

論文種別：症例報告

タイトル：両側頸静脈球部の狭窄及び閉塞にステント留置術が奏功した両側横静脈洞部硬膜動静脈瘻の1例

Successful stentings for bilateral jugular bulb stenosis/occlusion in a case with bilateral transverse sinuses dural arteriovenous fistulas: case report

著者名：村田貴弘，長島久，一之瀬峻輔，内山俊哉，小山淳一，本郷一博

Takahiro Murata, Hisashi Nagashima, Shunsuke Ichinose, Toshiya Uchiyama, Jun-ichi Koyama, Kazuhiro Hongo

所属施設名：信州大学医学部脳神経外科

Department of Neurosurgery, Shinshu University School of Medicine

連絡著者：村田貴弘

連絡先：信州大学医学部脳神経外科 〒390-8621 松本市旭 3-1-1,
TEL0263-37-2690 , FAX0263-37-0480 , email:
tmurata@shinshu-u.ac.jp

key words: dural arteriovenous fistula (d-AVF), jugular bulb, percutaneous transluminal sinus stenting, sinus thrombosis,

sinus stenosis

本論文を，日本脳神経血管内治療学会機関誌「JNET Journal of Neuroendovascular Therapy」に投稿するにあたり，筆頭著者，共著者によって，国内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないことを誓約致します。

和文要旨

Objective: 両側横静脈洞部硬膜動静脈瘻 (d-AVF) に伴った両側頸静脈球部の狭窄と閉塞に対してステント留置術を施行し、奏功したので報告する。

Case Presentations: 症例は 71 歳女性。急速に進行する認知機能低下と意識障害で発症，両側横静脈洞部にびまん性の d-AVF と左頸静脈球部狭窄と右頸静脈球部閉塞を認め，著明な頭蓋内静脈うっ滞を伴っていた。可及的な塞栓術により症状は一時的に改善したが，1 年後に症状が再燃した。根治的な塞栓術は困難と判断し，症候の原因と考えられた両側頸静脈球部に対するステント留置術を行い，症状は改善した。

Conclusion: d-AVF に伴った静脈洞狭窄症・閉塞症に対するステント留置術は有用であると考えられた。

緒言

硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula: d-AVF) は静脈洞血栓症による静脈洞狭窄や閉塞をしばしば伴い，その病態や病状の進行等に深く関与する。その成因については様々な議論があり，外傷や開頭術、静脈洞血栓症に引き続いて発症することが知られており，静脈洞内の血栓化や圧上昇、炎症などが d-AVF の成因になるという報告がある¹⁾。一方，動静脈シャントの存在が静脈洞の血栓化を進行させ，静脈洞内の圧上昇とともにシャントが限局化し、収束してゆく傾向も報告されている²⁾。d-AVF に伴う静脈洞狭窄・閉塞は，d-AVF の治療に伴う病態の改善に重要な要因となる。

今回我々は、急速に進行する認知症で発症し、両側頸静脈球部の狭窄及び閉塞を伴った両側横静脈洞部 (transverse sinuses: TSs) d-AVF に対して、静脈圧亢進の改善を目的とし最終的に両側頸静脈球部にステントを留置し、奏功した症例を経験した。渉猟した限りでは、これまでに頸静脈球部にステントを留置した報告はなく、d-AVF に対するステント留置術に関する考察を加え報告する。

症例呈示

症例：71歳，女性

主訴：意識障害，認知機能低下

既往歴：肺塞栓症（ワーファリン内服中）

現病歴：

6ヶ月前より易転倒性と認知機能低下が出現し、近医を受診した。症状は進行性で、発症より5ヶ月後には起立歩行不能となるとともに意識障害を来し、MRI上の両側大脳皮質の広範な浮腫性変化と、MRAでdural AVFが疑われ、紹介転院となった。

入院時所見：

意識障害は変動があり、Glasgow Coma Scale (GCS)で6～11点、失語症と四肢麻痺を認め、日常生活動作は経鼻経管栄養を要する全介助の状態であった。

神経放射線学的所見：

血管造影では両側の後頭動脈、中硬膜動脈、椎骨動脈 (vertebral artery: VA) 筋肉枝と後硬膜動脈など多数の血管から流入し、静脈洞交会から左のTSに主座を持つd-AVFを認めた (Fig.1)。静脈流

出路は、左頸静脈は順行性に流出するも球部で狭窄を認め、右は同部位で閉塞し、細い経路を介して椎骨静脈叢へと流出を認めた (Fig.1)。上矢状静脈洞 (superior sagittal sinus: SSS) と直静脈洞は逆行性に描出され、著明な皮質静脈逆流所見を認めた。両側内頸動脈撮影では、脳循環の SSS への順行性流出を認めず、頭蓋内静脈のうっ滞所見を認めた。

脳血管内治療：

第 1 回

MRI で微小な脳内出血の出現を認めたため、準緊急な治療が必要と判断した。治療は、シャントが流入する静脈洞近傍の静脈拡張部をコイル 23 本 (165.5 cm) で可及的に経静脈的塞栓術 (transvenous embolization: TVE) を行い、両側の中硬膜動脈と後頭動脈を液状塞栓物質で経動脈的塞栓術 (transarterial embolization: TAE) を行った。シャント量は減少し、術後は徐々に意識障害が改善したため、更なる改善を期待して 2 回目の塞栓術を行う事とした。

第 2 回

初回治療から 1 ヶ月後に静脈洞交会下部のシャント流入部をコイル 22 本 (192 cm) で TVE を行い、十分な抗凝固療法下に左頸静脈球部の狭窄部を PTA バルーン (Gateway 4.0x20 mm, Stryker, Kalamazoo, MI, USA) を用いて低圧 (4 atm) での経皮的血管形成術 (percutaneous transluminal angioplasty: PTA) を行った。狭窄の改善とともに、順行性血流が増加し、皮質静脈逆流は残存する

ものの、頭蓋内静脈還流は術前より改善した。

第 1・2 回治療後経過

2 回の治療によるシャント量の減少と流出路狭窄の改善の結果、MRI での大脳皮質の浮腫は消失した。神経学的には GCS14 点、MMSE10 点まで改善し、歩行及び経口摂取も可能となり、リハビリテーション目的で転院となった。初回治療より約 4 ヶ月後には日常生活動作が自立し、自宅に独歩退院となった。しかし、2 回目治療より約 1 年後に徐々に歩行の不安定性と認知機能低下が再び出現し、再び意識障害を呈するに至った。MRI で両側大脳皮質の広範な浮腫性変化があり (Fig.2)、脳血管撮影では、前回残存した両側 VA の筋肉枝と後硬膜動脈等からのシャント血流量が増加するとともに、左頸静脈球部の狭窄が再び増悪し、著明な皮質静脈逆流所見を認めた (Fig.2)。

第 3 回

残存シャントの閉塞は静脈洞交会を含めた SSS から直静脈洞までの閉塞を行わないと不可能と判断し、静脈流出路の温存を目的とした両側頸静脈球部の PTA を再度試みる方針とした。左頸静脈球部の狭窄に対しては、PTA バルーン (Sterling 5.0x30 mm, Boston Scientific, Natick, MA, USA) を用いた拡張を行った。また、閉塞していた右頸静脈球部もマイクロガイドワイヤーで容易に貫通することができたため、PTA バルーン (Sterling 4.0x20 mm) を用いた拡張を行い、再開通した。両側頸静脈球部の拡張に伴い、皮質静脈

逆流が改善した。

第 4 回

3 回目治療から 3 週間後に、病院倫理委員会の承認のもとに、両側頸静脈球部の再狭窄を防止するために、ステント留置術を計画した。抗凝固薬を継続するとともに（PTINR 2.0 前後）、2 剤の抗血小板剤（アスピリン、クロピドグレル）を開始し、術中はヘパリンを用いて activated clotting time (ACT) が 200 秒以上となる様に管理した。局所麻酔下に左大腿静脈を穿刺し、6Fr のガイディングシース（Shuttle, COOK MEDICAL, Bloomington, IN, USA）を右内頸静脈に留置し、マイクロカテーテル（Excelsior1018, Stryker）とマイクロガイドワイヤー（Chikai14, 朝日インテック, 愛知）を用いて、再開塞していた右頸静脈球部を通過させた。マイクロガイドワイヤーを ChoICE PT Exchange 300 cm (Boston Scientific) に交換し、Aviator 4.0x20 mm (Cordis Endovascular, Miami Lakes, FL, USA) を狭窄部に誘導し、前拡張を行った後に、ステント（Precise Pro RX 6.0x20 mm, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA）を 1 本留置し、Shiden 5.0x20 mm (カネカメディックス, 大阪) を用いて後拡張を行った (Fig.3)。次にガイディングシースを左頸静脈に留置し、右側で使用したデバイスを用いて同様に前拡張を行った後に、左頸静脈球部に屈曲を考慮してステント（Precise Pro RX 8.0x30 mm）を 2 本留置し、後拡張も同様に行った (Fig.3)。術後の脳血管造影では、皮質静脈逆流が消失し、脳循環が SSS へ順行性に流出する所見が得られたので、ステント留置部の急性閉塞、

再狭窄がないことを確認し、終了した。

結果

術後 CT では、頸静脈球部の屈曲部にステントが良好に密着している所見を確認した (Fig.4)。1ヶ月後の MRI では大脳皮質の浮腫が消失し (Fig.4)、MRV にて両側頸静脈の良好な描出を確認したため (Fig.4)、抗血小板剤を 1 剤に減量した。神経学的に GCS15 点、MMSE22 点まで改善し、日常生活動作も自立したため、自宅に独歩退院となった。d-AVF は残存しているため、現在も外来にて経過を観察しているが、最終治療後 9 ヶ月経過した現在は完全に家庭内復帰し、MRV でも両側内頸静脈の描出も良好である。

考察

d-AVF に対する血管内治療としては、経静脈的に罹患静脈洞をコイルなどで閉塞することで根治を目指すことが最も一般的であるが、動静脈シャントが静脈洞にびまん性に存在する症例や、静脈洞交会部にシャントを認める症例などでは、罹患静脈洞の閉塞に伴い重篤な静脈還流障害を来す可能性があり、難治性である。本症例も静脈洞交会部を中心とした難治性の d-AVF で、神経学的な悪化が急速で重篤であったため、静脈流出路障害に対する頭蓋内静脈還流の改善を意図した治療を行った。本症例で、ステント留置術により Borden 分類³⁾で術前 Type II であった d-AVF が Type I となり、臨床症状が劇的に改善する高い治療効果が得られたことは、シャントによる静脈洞内への動脈血の流入と、静脈洞の狭窄や閉塞による流出路障

害の 2 つの機序による静脈圧亢進が，d-AVF の病態に深く関わっていることを改めて示唆している．これまでにも，本症例と同様に静脈流出路障害の改善を目的として d-AVF に伴う静脈洞狭窄・閉塞部に対して加療を行った報告がある^{4,5)}．原口ら⁴⁾は TS-S 状静脈洞(SS) d-AVF の根治術に先立って，合併した対側 TS-SS の高度狭窄に対し PTA が有用であった一例を報告し，PTA 前後の静脈洞内圧を測定した結果、PTA に伴い頭蓋内静脈鬱滞の改善と静脈洞内圧の低下が確認されたと報告している．本報告例では，ステント留置は行わず PTA のみで終了しているが，本症例においても，2 回目治療時は狭窄部の拡張により頭蓋内静脈うっ滞と順行性の静脈流出が改善したためステントは留置をしなかったが，再狭窄を来したため最終的にステント留置に至った．

d-AVF の治療における静脈洞内のステント留置術は近年の治療技術・デバイスの進化に伴い増加し報告が散見される⁵⁻¹¹⁾．これらの報告例の多くは，動静脈シャントの存在する罹患静脈洞に狭窄部・閉塞を伴い，ステントを罹患静脈洞に留置する事で狭窄を拡張し順行性の静脈流出路を温存するとともに，静脈洞壁を圧迫することでシャント部の閉塞を期待する目的で留置されている．一方，少数例ではあるが，本症例と同様にシャント病変から離れた静脈洞の狭窄部・閉塞部に対して留置した報告もある⁵⁾．ステントの留置部位としては TS から SS が多く⁶⁻⁸⁾，SSS^{9,10)} や直静脈洞^{5,11)} の報告も見られる．使用されているステントは，瘻孔閉塞や血栓の押さえ込みを目的としてバルーンもしくは自己拡張式の closed-cell stent が多く^{5-7,9,11)}，バルーン拡張式の covered stent を使用した報告も散

見する^{8,10)}。我々が渉猟し得た限りでは、頸静脈球部の狭窄・閉塞に対するステント留置術の報告は見られず、また静脈洞内に open-cell stent を留置した報告も見られなかった。頸静脈球部は頭蓋底に囲まれて強く屈曲しているため、我々は屈曲部への密着性に優れた open-cell stent を選択し、良好な結果を得ることが出来た。

一方、本例では d-AVF 病変が残存したままでの静脈洞内へのステント留置術を行っており、ステント内血栓症による再狭窄・再閉塞の予防は重要な課題である。Levrier⁷⁾ は 10 例の TS から SS の d-AVF にステント留置術を施行し、術後抗血栓療法を行わなかった 1 例で術後脳出血を来しており、血栓化による皮質静脈閉塞により出血を来したと推測し、この症例以降はクロピドグレルを術前より投与し術後 3 ヶ月間継続している。また、Spiotta¹⁰⁾ は SSS から静脈洞交会部の d-AVF に covered stent を留置し、術後アスピリン・クロピドグレルの 2 剤内服とヘパリン静脈投与による十分な抗血栓療法を実施していたにもかかわらず、術後 4 日目にステント内血栓症による SSS 閉塞を来した症例を報告している。この症例では、静脈血栓塞栓症を来しやすい第 V 因子の Leiden 変異があり、それがステント内血栓の形成に影響した可能性が示唆されている。本症例も既往に肺塞栓症があり、何らかの凝固異常症が潜在している可能性もある。本症例の初回治療時は、わずかながら脳出血所見を呈していたため、TVE と TAE で血流低下を行い、2 回目及び 3 回目では十分に抗凝固療法を行った上で PTA を行った。現在のところ静脈洞内へのステント留置に対する周術期の抗血栓療法とその投与期間の定まった見解はなく、留置するステントの種類によって異なるも

の の、抗血小板剤内服と急性期の抗凝固剤の静脈または内服投与を行った報告が多く^{8,10,11)}、抗血小板剤の継続期間は様々である。我々は4回目治療時に、術前より抗血小板剤2剤と抗凝固剤による十分な抗血栓療法の下、ステント留置を行い、閉塞を来すことなく良好な結果を得ることができた。d-AVFと静脈洞血栓症は密接に関連すると考えられており、背景に過凝固状態やプロテインC欠損症などの非遺伝性血栓形成傾向が潜在している可能性もあるため、d-AVF症例に対するステント留置の適用は慎重に判断する必要がある。しかし、症例を選ぶとともに、PTAからステント留置に至る段階的な治療と適切な抗血栓療法を行うことで、良好な結果が得られると思われた。

結 論

両側頸静脈球部の狭窄と閉塞に対してステント留置術が奏功した両側TSs d-AVFの1例について報告した。静脈流出路障害や静脈圧亢進を起こしている静脈洞狭窄・閉塞に対してステント留置は有効であると思われる。d-AVFと静脈洞血栓症は密接に関連していると考えられており、その留置に際しては症例に応じた適切な抗血栓療法が必要と思われた。

利益相反の開示

本症例の報告にあたり、筆頭著者および共著者全員に利益相反はない。

文献

1. Lasjaunias P, Berenstein A. Surgical Neuroangiography. Vol 2.2. Springer-Verlag. Germany, 2004, 565-607.
2. Satomi J, Satoh K, Matsubara S, et al. Angiographic changes in venous drainage of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae after palliative transarterial embolization or observational management: a proposed stage classification. Neurosurgery. 2005;56:494-502.
3. Borden JA, Wu JK, Shucart WA. A proposed classification for spinal and cranial dural arteriovenous fistulous malformations and implications for treatment. J Neurosurg. 1995;82:166-179.
4. Haraguchi K, Matsumoto Y, Kondo R, et al. Percutaneous transluminal sinus angioplasty for transverse sinus-sigmoid sinus stenosis associated with recurrent dural arteriovenous fistula: case report. JNET. 2010;4:33-39, Japanese.
5. Troffkin NA, Graham CB III, Berkmen T, et al. Combined transvenous and transarterial embolization of a tentorial-incisural dural arteriovenous malformation followed by primary stent placement in the associated stenotic straight sinus. Case report. J Neurosurg. 2003;99:579-583.
6. Murphy KJ, Gailloud P, Venbrux A, et al. Endovascular treatment of a grade IV transverse sinus dural arteriovenous fistula by sinus recanalization, angioplasty, and stent placement: technical case report. Neurosurgery.

2000;46:497-500.

7. Levrier O, Metellus P, Fuentes S, et al. Use of a self-expanding stent with balloon angioplasty in the treatment of dural arteriovenous fistulas involving the transverse and/or sigmoid sinus: functional and neuroimaging-based outcome in 10 patients. *J Neurosurg.* 2006;104:254-263.

8. Choi BJ, Lee TH, Kim CW, et al. Reconstructive treatment using a stent graft for a dural arteriovenous fistula of the transverse sinus in the case of hypoplasia of the contralateral venous sinuses: technical case report. *Neurosurgery.* 2009;65:E994-E996.

9. Ohara N, Toyota S, Kobayashi M, et al. Superior sagittal sinus dural arteriovenous fistulas treated by stent placement for an occluded sinus and transarterial embolization. A case report. *Interv Neuroradiol.* 2012;18:333-340.

10. Spiotta AM, Sivapatham T, Hussain MS, et al. Combined surgical and endovascular approach to a complex dural arteriovenous fistula involving the superior sagittal sinus and torcula. *J Stroke Cerebrovasc Dis.* 2012;21:283-288.

11. Takada S, Isaka F, Nakakuki T, et al. Torcular dural arteriovenous fistula treated via stent placement and angioplasty in the affected straight and transverse sinuses: case report. *J Neurosurg.* 2015;122:1208-1213.

図表の説明

Figure 1: A: Frontal projection of the left external carotid artery (ECA) angiogram (early arterial phase) demonstrating left transverse sinus (TS) dural arteriovenous fistula (d-AVF) (arrow) with blood supply provided through the left occipital artery and middle meningeal artery. B: Left antero-oblique (LAO) projection of the left ECA angiogram (late arterial phase) disclosing stenosis of the left jugular bulb (single arrowhead) and occlusion of the right jugular bulb (double arrowhead).

Figure 2: A: MR image (FLAIR) before 3rd intervention showing extensive cortical edema in the bilateral cerebral hemispheres. B: Frontal projection of right vertebral artery (VA) angiogram (early arterial phase) showing that d-AVFs at the sinus confluence and the medial portion of right TS (arrow) were fed by the multiple feeders from muscular branches and the posterior meningeal artery of the right VA. Aggravation of these d-AVFs were also noted. C: LAO projection of the left ECA angiogram (late arterial phase) demonstrating progressive stenosis of the left jugular bulb (arrowhead).

Figure 3: A: Frontal projection of fluoroscopic image during balloon dilatation of the right jugular bulb following stenting demonstrating sufficient dilatation of the occluded portion

(single arrow). B: Lateral projection of the right VA angiogram showing recanalization of the right jugular bulb (single arrowhead). C: Frontal projection of fluoroscopic image during balloon dilatation of the left jugular bulb after stent placement demonstrating sufficient dilatation of the stenotic portion (double arrow). D: Lateral projection of the left CCA angiogram showing dilatation of the left jugular bulb (double arrowhead).

Figure 4: A: Post-stenting CT scan demonstrating that the stents in the both jugular bulb are sufficiently expanded (arrow). B: MR image (FLAIR) after 1 month from stent placement showing disappearance of cortical edema. C: Time-of-flight MR venography (frontal projection) after 1 month from stenting disclosing good patency of the both internal jugular veins (white arrowheads).

Fig. 1

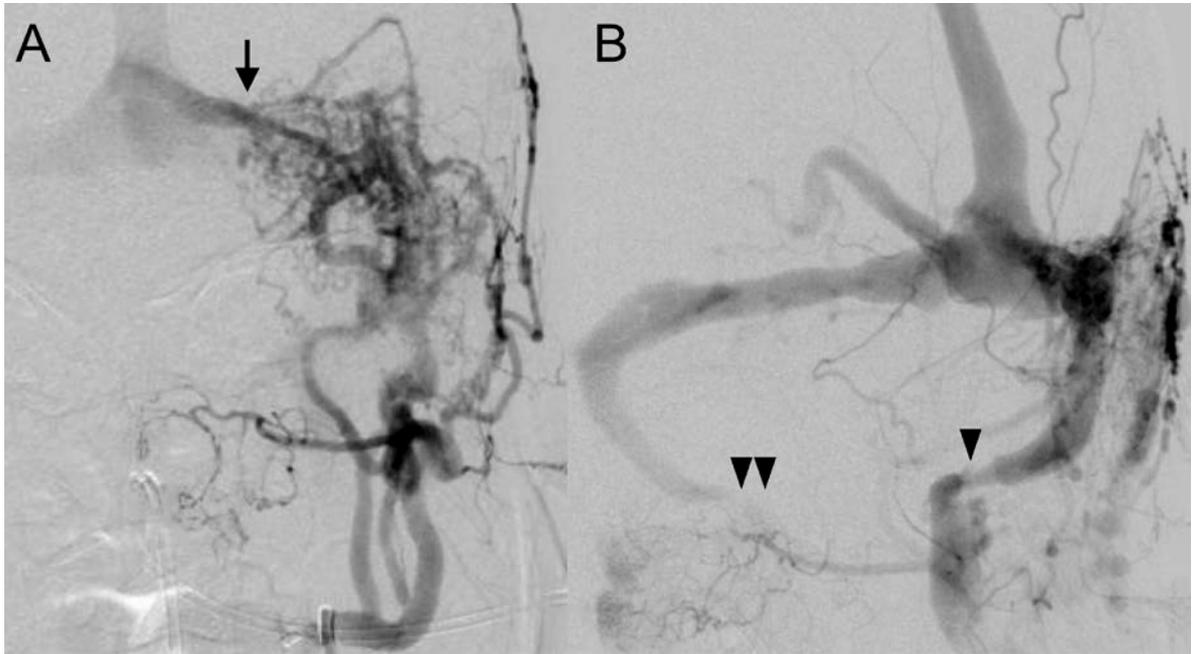


Fig. 2

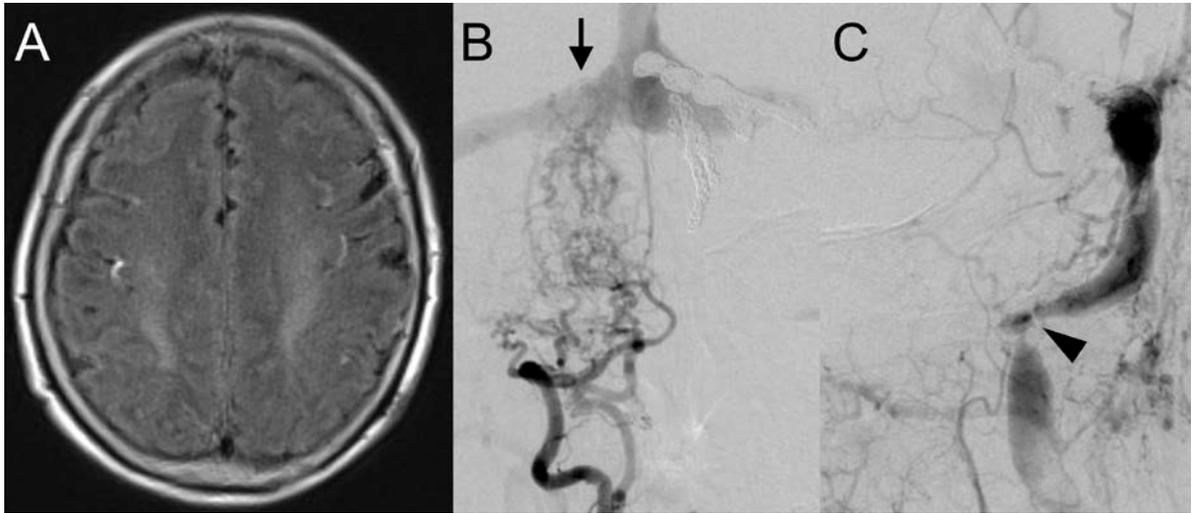


Fig. 3

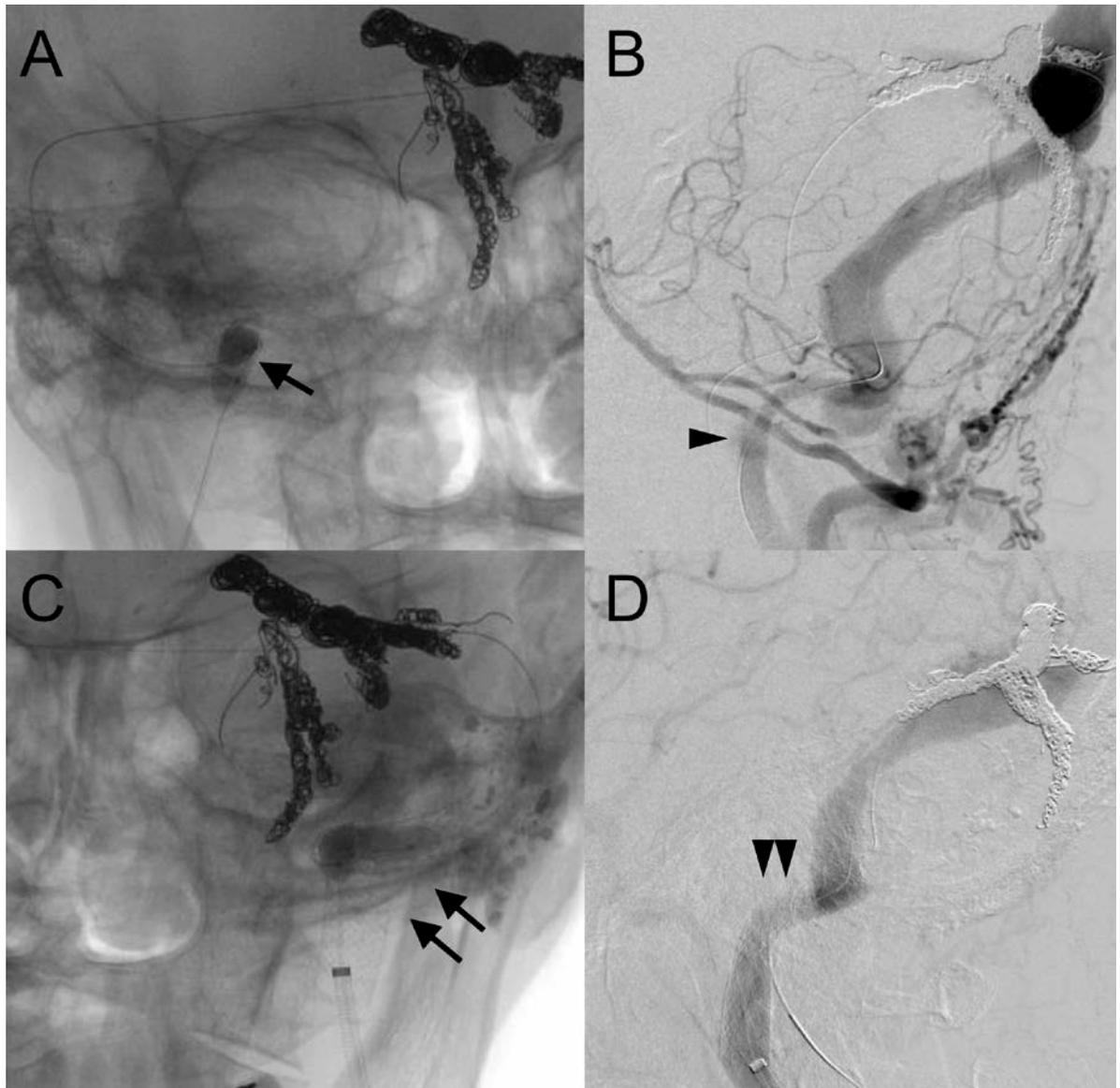


Fig. 4

