Transvenous embolization of cavernous sinus dural arteriovenous fistulas with shunts involving the laterocavernous sinus

(Laterocavernous sinus へのシャントを有する海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻に対する 経静脈的塞栓術)

Mika Okahara<sup>1,2</sup>, Hiro Kiyosue<sup>2</sup>, Yuzo Hori<sup>3</sup>, Satomi Ide<sup>3</sup>, Syuichi Tanoue<sup>2</sup>, Hiromu Mori<sup>2</sup>

- 1. Shinbeppu Hospital, Department of Radiology
- 2. Oita University, Faculty of medicine, Department of Radiology
- 3. Nagatomi Neurosurgical Hospital, Department of Radiology

# Adress

3898 Tsurumi Beppu-shi Oita 874-0833 Japan

## Corresponding author;

Mika Okahara M.D.

Shinbeppu Hospital, Department of Radiology

3898 Tsurumi Beppu-shi Oita 874-0833 Japan

Tel +81-977-22-0391 Fax +81-977-27-0098

Email okahara@oita-u.ac.jp

Keywords; dural arteriovenous fistula, cavernous sinus, laterocavernous sinus

All authors pledge that this manuscript does not contain previously published material and is not under consideration for publication elsewhere.

#### 要旨

目的:Laterocavernous sinus (LCS)は海綿静脈洞(CS)の外側に存在する硬膜で境され た静脈洞の正常変異であり浅中大脳静脈が還流する。今回、LCS に shunt を有する海 綿静脈洞部硬膜動静脈瘻(CSDAVF)症例の血管造影所見および経静脈塞栓術(TVE)を検討 し、治療における留意点について考察する。方法:2007年から2015年10月の期間で TVE を施行した CSDAVF27症例に対し、3DDSA/DA 画像および選択的動脈造影を用いて LCS へのシャントの有無を確認した。その後LCS にシャントを有する症例について血 管造影所見、TVE について検討した。結果:LCS への shunt は4例(14.8%)にみら れ、全例で CS から LCS に複数の shunted pouch を有し、LCS への feeder は正円孔動 脈、中硬膜動脈あるいは副硬膜動脈であった。LCS を介する浅中大脳静脈.または鈎静 脈への逆流が全例にみられた。LCS と CS の連続は背側2例、外側2例であった。全例 マイクロカテーテルをLCS に挿入し塞栓を行ったが、CS と LCS が背側で連続している 症例ではLCS への挿入に時間を要した。全例症状は消失し合併症は認めなかった。結 論: LCS へのカテーテル挿入は CS の背側に LCS が合流する場合には困難なことがあ り注意を要する。LCS にシャントを有する症例では CS のみの塞栓では皮質静脈逆流の みが残存する Borden type3 となる可能性があり注意が必要である。

#### はじめに

硬膜動静脈瘻に対する血管内治療の有用性はすでに確立しており、海綿静脈洞部硬膜 動静脈瘻(cavernous sinus dural arteriovenous fistula; CSDAVF)に対してはその 安全性と根治性から経静脈的塞栓術が選択されることが多い(1,2)。

Laterocavernous sinus (LCS) は Cavernous sinus (CS)の lateral component の外側 に位置し、CS とは inner dural layer で境界された静脈洞の正常変異であり、浅中大 脳動脈の還流路のひとつとして知られる。LCS は CS の後方に合流するか中頭蓋窩を貫 通して pterygoid plexus に合流、または背側に走行して transverse sinus に合流す るとされる(3,4)。CSDAVF の症例の中には LCS にシャントを有するものや LCS が還流 路となっているものが存在することが知られている(5-7)。今回我々は LCS にシャント を有する CSDAVF 症例の血管造影所見および経静脈塞栓術を検討し、治療における留意 点について考察する。

#### 対象と方法

2007 年1月から 2015 年 10 月の期間に経静脈的塞栓術を施行された海綿静脈洞部硬膜 動静脈瘻 27 例のうち Laterocavernous sinus にシャントを認めた 4 例 (14.8%) にお いて治療前の血管造影所見および治療手技について retrospective に検討した。全例 女性であり、年齢は 61 歳~75 歳 (平均年齢 68 歳) であった。全例 Borden type2 で あり、患側の下錐体静脈洞 (inferior petrosal sinus; IPS は 3 例で閉塞していた。 主訴は全例眼症状が見られ、うち 2 例では耳鳴りを伴っていた。臨床的特徴を Table1 に示す。

全例両側内頚動脈、外頚動脈椎骨動脈の選択的脳血管撮影(selective digital subtraction angiography)がbilpane 血管造影装置(Innova3131, GE Medical Systems, Milwaukee; Infinitx VB, Toshiba Medical, Tokyo)で撮像された。硬膜動 静脈瘻が描出された場合には引き続き3D回転撮影を行った。回転撮影のデータから Workstation (Advantage Workstation, GE Healthcare Milwaukee; Ziostation, Zio, Tokyo) を用いて MIP (maximum intensity projection) 、VR(volume rendering recondtruction)および 0.2-0.3mm 厚、0.5mm 間隔で再構成された MPR (multiplanar reconstruction) 画像を作成した。すべての血管造影を経験年数 10 年以上の神経放射 線科医 2 名で評価し、shunted pouch、feeding artery、Laterocavernous sinus

(LCS) へのシャント部、drainage route、海綿静脈洞とLCS の連続様式、浅中大脳静 脈 (superficial middle cerebral vein; SMCV) および鈎静脈(uncal vein;UV)の還流 様式について二人の合意で決定した。

全例局所麻酔下に経静脈的塞栓術が施行された。Approach route は1例は同側の IPS、1例は閉塞した同側の IPS、1例では対側の IPS から intercavernous sinus を介 して,一例は同側の閉塞した IPS および脳底静脈叢であった。治療後経過観察の血管 造影は治療1週間後に行われ、残存がない場合には3ヶ月後に MR angiography を行 い、その後6ヶ月ごとに MR angiography にて経過観察を行った。

LCS と海綿静脈洞の連続様式とLCS へのマイクロカテーテルの誘導の難易度の関係、塞 栓術直後の治療結果および合併症、再発の有無についても検討した。

#### 結果

経静脈的塞栓術が施行された 27 例中 LCS にシャントの見られた 4 例 (14.8%) の血管造 影所見について Table2 に示す。全例 LCS 以外に海綿静脈洞 (cavernous sinus; CS) に shunted pouch があり、3 例では CS に複数の shunted pouch が認められた。1 例では sphenoparietal sinus にも shunted pouch が認められた。LCS の shunted pouch への feeding artery は中硬膜動脈 (n=2)、正円孔動脈 (n=3)、副中硬膜動脈 (n=2) であっ た。LCS と UV および SMCV の合流にはいくつかのタイプが報告されているが (8)、3 例で は SMCV に UV が合流後 LCS に合流するタイプであり、1 例(case3)では UV のみが LCS に合流し、SMCV は LCS に関与しないタイプであった。

LCS へのシャント部は 3 例で LCS の後方部分に、1 例 (case3) では UV の LCS 合流部よ り腹側に見られた (Figure 1)。Drainage route は全例で上眼静脈への逆流が見られ、3 例で LCS から SMCV および UV への逆流が、UV のみが LCS に合流していた 1 例 (case3) では LCS から UV への逆流が見られた。その他 2 例で prepontine bridging vein への逆 流が見られ、Intercavernous sinus を介した対側への還流が 2 例で認められた。 Approach route は 2 例は同側の IPS (一例は閉塞していた)、対側の IPS から intercavernous sinus を介して、1 例は閉塞した同側 IPS および Basilar plexus であ った。手技や治療結果、再発の有無について Table3 に示した。CS に LCS が合流してい る部位は 2 例で背側部分、2 例で外側部分 (Case4, Figure2)に認められたが、前者で は CS から LCS へのマイクロカテーテルの誘導が困難で、カテーテル誘導に時間を有し た (Case3, Figure 1)。初回治療で 3 例はシャントの消失が得られたが、1 例では初回 治療時に皮質静脈逆流は消失したが、CS へのシャントの残存があり、3 回目の治療でシ ャントの完全消失が得られた。明らかな合併症はなく、治療後経過観察中の再発も認め られなかった。

#### 考察

LCS は SMCV からの皮質血流が還流する primitive tentorial sinus に由来し、妊娠第 8週の間に CS の外側壁が形成される時に primitive tentorial sinus が CS の内側へ 移動する際に形成されると考えられている(3)。San Millan Ruiz D らは剖検例 29 例 58 側について検討し、24.1%(14/58)で LCS が認められ、そのうち 13 例は SMCV が LCS に流 入し、残りの一例は SMCV の流入はなく UV のみの流入がみられたと報告している(4)。 我々の症例では 3 例では UV が SMCV に合流した後 LCS に合流しており、1 例 (Figure1) では SMCV は LCS に連続せず、UV のみが LCS の前方部分に合流していた。LCS と CS との 連続には二通りあり、LCS が CS の後方部分に終止する場合 (Figure1)と Pterigoid plexus あるいは上錐体静脈洞に連続する LCS が CS に近接して走行する部分で CS の外 側壁の内層との間に連続を有する場合 (Figure2)がある (3,4)。Gailloud P らは血管造 影所見から LCS について検討しており、22% (22/100)に LCS が認められ、そのうち 36.5% (8/22)で LCS と CS の連続が確認され、その大部分 (7/22,32%) が CS の背側部分 に終止していたと報告している (3)。トルコ鞍外側の血流腔は二つに分けられ、medial system には上眼静脈、CS、IPS が含まれ、lateral system には SMCV を介して上錐体静 脈洞、pterygoid plexus や横静脈洞に還流する皮質静脈還流が含まれる。後者には paracavernous sinus や LCS、CS の前上方に SMCV が終止する場合が含まれる。CSDAVF 症例でこの外側部分への逆流が存在すると皮質静脈や深部静脈への逆流を伴う Borden type2 以上に分類され、出血のリスクが高い疾患群となる。

これまでLCS への静脈還流を伴う CSDAVF に対する血管内治療の報告はLv Xら(5,6)に よってなされており、CSDAVF32例中7例(21.8%)でLCS を介した SMCV あるいはpetrosal vein への逆流が見られたとしている(7)。3 例は経静脈的塞栓術のこりの4例は経動 脈的塞栓術で合併症なく完治したと報告している。また、San Millan Ruiz Dら(10) は皮質静脈逆流を伴った CSDAVF 症例に対して経動脈的塞栓術を行ったが、その後頭痛 の増悪があり、血管造影にて皮質静脈逆流の残存を確認した。その際の DSA にてシャ ントが LCS に存在し、LCS は Pterygoid plexus に還流し、CS への連続が認められなか ったため、Pterygoid plexus から LCS へマイクロカテーテルを誘導し、経静脈的塞栓 術を行い完全閉塞が得られたと報告している。

このように LCS が還流路となっているだけでなく、LCS そのものにシャントが存在する 場合の経静脈的塞栓術においては LCS へのシャントを残したまま CS の塞栓のみを行っ た場合、皮質静脈逆流のみの残存する Borden type3 になる危険性が高く、LCS へのマ イクロカテーテル挿入が必要となる。我々の研究では 27 例の海綿静脈洞部硬膜動静脈 瘻症例中4例(14.8%)でLCS へのシャントが認められ、CS との連続は後方部分、外側 とも2例ずつであった。CS の後方部分にLCS が合流している症例では CS の前方から挿 入したマイクロカテーテルを背側で一旦反転させてLCS に挿入する必要があり、LCS へ のマイクロカテーテル誘導に時間を要した。治療前に CS と LCS の連続部分を確認する ことが必要となるが通常の DSA のみでは CS と LCS との関係を十分に理解することは困 難であり、回転撮影の再構成画像(MPR)での観察が有用である。

#### 結語

CSDAVF の一部の症例では LCS にシャントが存在する場合があり、そのような症例では CS のみの塞栓では皮質静脈逆流のみが残存する Borden type3 の DAVF となる危険性が あり、治療の際注意が必要である。CS の背側部分に LCS が連続している体部では LCS へ のカテーテル挿入が困難なことがあり術前の血管構築の検討が重要である。

## 利益相反開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない

## 参考文献

- 1. Kirsch M, Henkes H, Liebig T et al. Endovascular management of dural carotidcavernous sinus fistulas in 141 patients. Neuroradiology 2006;48:486-490
- Kiyosue H, Hori Y, Okahara M, et al. Treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas: current strategiesbased on location and hemodynamics, and alternative techniques of transcatheter embolization.

Radiographics 2004;24(6):1637-1653

- 3. Gailloud P, San Millan Ruiz D, Muster M, et al. Angiographic anatomy of the laterocavernous sinus. AJNR Am J Neuroradiol. 2000;21(10):1923-1929
- San Millan Ruiz D, Gailloud P, de Miquel MA, et. al. Laterocavernous sinus. Anat Rec. 1999;254(1):7-12
- Lv X, Jiang C, Li Y, et al. The laterocavernous sinus system: venous inflow, venous outflows, and clinical significance. World Neurosurg. 2011; 75(1):90-93
- Lv X, Jiang C, Li Y, et al. Endovascular treatment of dural fistulas with the venous outflow of laterocavernous sinus. Eur J Radiol. 2010;75(2)e129-134
- 7. San Millan Ruiz D, Oka M, Fasel JH, et al. Transvenous embolization of a dural arteriovenous fistula of the laterocavernous sinus through the pterygoid plexus. Neuroradiology 2007; 49: 665-668
- Ide S, Kiyosue H, Tanoue S et al. Anatomical variations in termination of the uncal vein and its clinical implications in cavernous sinus dural arteriovenous fistulas. Neuroradioligy 2014;56:661-668

### Figure legend

## Figure 1

Case 3: A 64-year-old female presenteding with right chemosis and diplopia. Sagittal partial MIP image of rotational angiography of right external carotid angiography (a) shows the dural arteriovenous fistula involving the right cavernous sinus and laterocavernous sinus (LCS) draining into the superior ophthalmic vein and uncal vein (UV). Shunt to LCS (arrows) is present anterior aspect of LCS connecting with UV. And LCS connect to posterior aspect of CS. Lateral view (b) of selective venography after coil embolization of anterolateral shunted pouch of CS shows a micocatheter tip located in the LCS. UV is also noted. Lateral view of right maxillary angiography (c) after coil embolization of LCS shows residual shunt of LCS and reflux for deep venous system through the UV. Lateral view of right maxillary angiography (d) after 33% NBCA-LPD injection from LCS and coil embolization of posterolateral shunted pouch of CS shows disappearance of the cavernous sinus dural arteriovenous fistula.

#### Figure 2.

Case 4: A 75-year-old female presenteding with right chemosis. Sagittal MIP image of rotational angiography of right external carotid angiography (a) shows the dural arteriovenous fistula involving the right cavernous sinus and laterocavernous sinus (LCS) draining into the superior ophthalmic vein, superior middle cerebral vein (SMCV) and uncal vein (UV). And the shunt to LCS is also shown (white arrow). The axial reformatted image (b) of the right external carotid angiography shows shunted pouches of right cavernous sinus. And the connection between cavernous sinus and LCS is shown (white arrowhead). Front-caudal view (c) shows shunt of cavernous sinus and LCS (arrow), and also shows drainage to superior ophthalmic vein (SOV), SMCV, deep middle cerebral vein (DMCV), and basal vein. Lateral view (d) of right common carotid angiography after shunted pouches of cavernous sinus and LCS shows the disappearance of the cavernous sinus dural arteriovenous fistula. DMCV; deep middle cerebral vein

# Table 1

011414000	iscies of the			into ini or ing the ia	
Patient	Age/Sex	Symptoms	Site	Borden's type	IPS
No					
1	72/F	Diplopia, Chemosis, tinnitus	Right	П	Occluded
2	61/F	Dioplopia, Chemosis, tinitus	Left	П	Patent
3	64/F	Diplopia, Chemosis	Right	П	Occluded
4	75/F	Chemosis	Right	П	Occluded
TDC. · C	1				

Characteristics of 4 patients of cavernous sinus dural arteriovenous fistulas with shunts involving the laterocavernous sinus

IPS; inferior petrosal sinus

Patient	Shunted pouch	Feeding arteries	Shunted site of LCS	Connection site between	Drainage route
No.				CS and LCS	
1	LCS	MMA, AFR	Posterior site of LCS	Dorsal	LCS-SMCV-UV
	CS				Prepontine bridging vein
	Posteromedial	APA			SPS, SOV
	Medial	APA, AFR			
	Sphenoparietal sinus	MMA, AFR, AMA			
2	LCS	MMA, AMA	Posterior site of LCS	Lateral	LCS-SMCV-UV
	CS				Prepontine bridging vein
	Poteromedial	APA			SOV
	Posterolateral	AFR, MMA			ICS-contralateral SOV/IPS
	Lateral	MMA, AFR, AMA			
3	LCS	AFR	Anterior site of junction	Dorsal	LCS-UV
	CS		of UV and LCS		SOV
	Anterolateral	MMA, AFR, AMA,			
	Posterolateral	RMA from OPA			
4	LCS	AMA, AFR	Posterior site of LCS	Lateral	LCS-SMCV-UV
	CS				SOV
	Medial	AMA, APA			ICS-contralateral SOV
	Posterolateral	MMA, AMA, APA			
	Posteromedial	MMA, AMA, APA			

Table 2Angiographical features of patients

LCS; laterocavernous sinus, CS; cavernous sinus, MMA; middle meningeal artery, AFA; artery of foramen rotundum, APA, ascending

pharyngeal artery, AMA; accessory meningeal artery, RMA; recurrent meningeal artery, OPA; ophthalmic artery, SMCV; superior middle cerebral vein, UV; uncal vein, ICS; intercavernous sinus, SOV; superior ophthalmic vein, SPS; superior petrosal sinus

14010 0	11000044110,010040111011011010	int, toimpireation	i alla lollo (i up		
Patient	Approach route	Connection	Difficulty of insertion	Treatment results	Recurrence/follow-up period
No.		site between	of microcatheter into		
		$\operatorname{CS}$ and $\operatorname{LCS}$	LCS		
1	Ipsilateral patent IPS	Dorsal	Difficult	Marked regression	None/103 months
				(Complete occlusion at	
				third procedure)	
2	Ipsilateral occluded IPS	Lateral	Easy	Complete occlusion	None/101months
3	Contalateral IPS-ICS	Dorsal	Difficult	Complete occlusion	None/13 months
4	Ipsilateral occluded IPS	Lateral	Easy	Complete occlusion	None/8 months
	Basilar plexus				

Table 3  $\,$  Procedure, treatment result, complication and follow-up  $\,$ 



Fig.1a











Fig.1d



Fig.2a



Fig.2b

Fig.2c





