

1 論文種別：症例報告

2

3 出血発症多発性硬膜動静脈瘻に対し mastoid emissary vein を介し
4 た経静脈的塞栓術を組み合わせて治療した 1 例

5

6 岩橋 洋文¹，藤田 敦史²，田中 宏知¹，池田 充¹，森川 雅史
7 ¹，甲村 英二²

8

9 ¹ 宗教法人在日本南プレスビテリアンミッション 淀川キリスト教
10 病院 脳神経外科

11 ² 神戸大学大学院医学系研究科 脳神経外科学分野

12

13 連絡先：岩橋 洋文

14 宗教法人在日本南プレスビテリアンミッション 淀川キリスト教病
15 院 脳神経外科

16 〒533-0024 大阪府大阪市東淀川区柴島 1-7-50

17 TEL：06-6322-2250 内線 8713

18 Mail：hirofumi.iwahashi@gmail.com

19

20 キーワード：多発性硬膜動静脈瘻，脳出血，mastoid emissary vein，
21 経静脈的塞栓術，経大腿静脈

22

23 宣言：本論文を，日本脳神経血管内治療学会 機関誌「JNET
24 Journal of Neuroendovascular Therapy」に投稿するにあたり，筆

25 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

26 いないことを誓約致します．

27

1 和文要旨

2 Objective: 大腿静脈経路による mastoid emissary vein (MEV)
3 を介した経静脈的塞栓術(TVE)を行った一例を報告する.

4 Case presentation: 右前頭葉皮質下出血で発症した 52 歳男性.
5 右横静脈洞-S 状静脈洞(TS-SS)部, 上矢状静脈洞(SSS)部に皮質静
6 脈逆流を伴った多発性硬膜動静脈瘻 (dAVF) を認めた. TS-SS 部
7 病変に対し, 経大腿静脈的に MEV 経路で TVE を行い, 二期的に
8 SSS 部 dAVF に対し TVE を施行, 両病変とも完全閉塞が得られた.
9 Conclusion: isolate された TS-SS 部 dAVF に対して MEV は有用
10 なアクセスルートである.

11

12 緒言

13 皮質静脈逆流を伴う頭蓋内硬膜動静脈瘻(dural arteriovenous
14 fistula; dAVF)においては, 年間死亡率 10.4%, 頭蓋内出血発症率
15 は 8.1%と予後不良であり, 積極的に治療を行うべきとされている¹⁾.
16 また, 頭蓋内多発性 dAVF の頻度は 6.7~8.1%と決して稀ではない
17 が, その存在部位には一定の傾向はないとされる^{2, 3)}. 本疾患に対
18 する治療の中心は血管内治療であり, 現段階では根治性の高い経静
19 脈的塞栓術(transvenous embolization; TVE)が選択されることが
20 多い. 今回我々は, 脳出血で発症した多発性頭蓋内 dAVF に対し,
21 段階的に TVE を行うことで根治が得られた症例を経験した. 本報
22 告では, isolated された横静脈洞(transverse sinus; TS)-S 状静脈
23 洞(sigmoid sinus; SS)部病変に対して, 経大腿静脈アプローチによ
24 る mastoid emissary vein; MEV 経路の TVE の有効性を報告する.

同部位に発生する isolate された病変において、静脈洞を介さず流出路になり得る MEV を経皮的に穿刺し TVE を行ったとの報告が散見される^{4,5)}が、血管撮影室で経皮的に MEV を穿刺することは必ずしも容易ではない。MEV は後頭下静脈叢を介して深頸静脈(Deep Cervical Vein; DCV)へ流入し、第七頸椎よりも尾側で椎骨静脈に注ぐ⁶⁾ことから、経大腿静脈的にもアプローチが可能であり、その有用性を報告する。

症例呈示

症例：52 歳男性

主訴：構音障害，左不全片麻痺

既往歴：高血圧症

生活歴：飲酒 ビール 1 缶，日本酒 2 合/日 喫煙歴なし

現病歴：201X 年入浴後構音障害を自覚，その後転倒し左不全片麻痺を認めたため当院に救急搬送された。頭部単純 CT で右前頭葉に脳内出血(4cm×5cm×4cm，推定 40ml)を認めたため精査加療目的に入院となった。

入院時神経学的所見：Glasgow Coma Scale; GCS E4V5M6，左半側空間無視，構音障害，左高度不全片麻痺(Manual Muscle Test; MMT 上肢 0/5，下肢 3/5)を認めた。

神経放射線学的所見：頭部単純 CT では右前頭葉に脳内血腫を認めた(Fig. 1A)。また頭部単純 MRI では T2 強調画像において両側大脳半球に発達した皮質静脈の flow void を認め(Fig. 1B, C)，MRA では右 TS, SS が描出されており(Fig. 1D)，dAVF が疑われた。DSA では

49 右後頭動脈 (Occipital Artery; OA) から分枝する stylomastoid
50 branch⁷⁾ を流入動脈とし右 TS-SS 部にシャントを有し,
51 temporobasal vein; TBV, Vein of Labbe へ流出する dAVF(Borden
52 type III, Cognard type III) を認めた (**Fig. 2A, B, C**). 一部は右 MEV
53 への流出を認めた. また左 OA, 両側浅側頭動脈 (Superficial
54 Temporal Artery; STA), 両側中硬膜動脈 (Middle Meningial
55 Artery; MMA) を流入動脈とし, SSS にシャントを有する
56 dAVF(Borden type II, Cognard type II a+b) も認めた. 両側大脳半
57 球の皮質静脈への逆流を伴っており, 著明な静脈鬱滞を認めた (**Fig.**
58 **2C**).

59 治療方針: 皮質静脈への逆流を伴った出血発症の多発性 dAVF であ
60 り, 再出血の危険性が高いと考え治療を計画した. 治療の順序とし
61 て, 右前頭葉の脳内血腫の発症に寄与したと思われる右 TS-SS 部
62 dAVF の治療を優先して行うこととし, 根治目的に TVE を行う方針
63 とした.

64 第 1 回血管内治療: 発症 3 日目に全身麻酔, ヘパリン持続投与下に
65 左右大腿動脈, 右大腿静脈に 7Fr long introducer を留置し, 左右総
66 頸動脈 (Common Carotid Artery; CCA) に 7Fr Roadmaster STR
67 90cm (グッドマン, 愛知) を留置した. 右 OA に 4Fr Celurean
68 125cm (メディキット, 東京) を誘導しコントロール撮影用の DSA
69 を施行した (**Fig. 3A, B**). シャントは右 TS-SS 接合部付近と, SS 下
70 部に存在すると考えられたが, 右 TS, SS はいずれも閉塞しており,
71 MEV から DCV へ流出していた (**Fig. 3B**). 比較的直線的な走行であ
72 る DCV を経由し MEV へアプローチする方針とした. 7Fr Fubuki

73 Hard STR 90cm(朝日インテック, 愛知), 5Fr JB2 125cm(メディキ
74 ット, 東京), 0.035inch ラジフォーカスガイドワイヤー 220cm(テ
75 ルモ, 東京)を右鎖骨下静脈まで進めていった. DCVは鎖骨下静脈合
76 流部直前で高度に屈曲し(**Fig. 3C**), ガイディングカテーテルの通過
77 に難渋したが, Amplatz Super Stiff 300cm(Boston Scientific,
78 Natick, MA, USA)を用い血管を進展させることで 7Fr Fubuki を進
79 めることができ, MEV へ 4Fr Celurean を誘導した(**Fig. 3D**).
80 Excelsior SL-10 microcatheter STR(Stryker, Neurovascular,
81 Fremont, CA, USA), 0.012inch GT ワイヤー double angle(テル
82 モ・クリニカルサプライ, 岐阜), 同 45°(同)を MEV から SS 下端に
83 誘導し, 2 本に分かれている静脈洞の背側側に誘導した. ここから
84 SS 下端直前までを Target Helical Ultra Detachable Coil(Stryker,
85 Neurovascular, Fremont, CA, USA)をアンカーとし(**Fig. 3D**),
86 Target XL mini(同), OrbitGalaxy Helical(Codman & Shurtleff,
87 Johnson & Johnson, Raynham, MA, USA), OrbitGalaxy Fill(同)
88 らを用いて塞栓した. 背側の罹患静脈洞を閉塞した後の撮影では,
89 残存している腹側静脈洞にシャントが残存し, 皮質静脈である TBV,
90 Vein of Labbe への逆流が認められたため(**Fig. 3E**), マイクロカテ
91 ーテルを腹側側の SS に誘導し, 逆流していた皮質静脈である TBV,
92 Vein of Labbe の起始部を閉塞したのちに, TS-SS 接合部付近のシャ
93 ント付近から腹側の罹患静脈洞を閉塞し, stylomastoid branch が
94 流入している SS 下端まで順次閉塞した(**Fig. 3F**). 右総頸動脈撮影
95 にてシャントおよび皮質静脈への逆流の消失と, SSS 部 dAVF によ
96 る静脈鬱滞が大きく悪化していないことを確認し手技を終了した.

造影剤使用量が 230ml となっており，SSS 部 dAVF については後日治療を行うこととした．鎮静，挿管下に ICU に帰室した．

第 1 回血管内治療後：翌日の頭部単純 CT, MRI にて血腫の増大や新規頭蓋内出血，梗塞無きことを確認し鎮静を解除，抜管した．麻酔からの覚醒は良好で術前後で神経学的症状の悪化を認めなかった．

第 2 回血管内治療：第 1 回の治療から 9 日後に全身麻酔下に開存した左 JV 経由で SSS 部 dAVF に対して TVE を行った．逆流していた皮質静脈を順次塞栓，SSS の sinus packing を行った．最終 DSA で皮質静脈への逆流消失，循環時間及び静脈鬱滞の改善を認めたため，手技を終了した(**Fig. 4A, B, C**)．使用した造影剤は 430ml であった．鎮静，挿管下に ICU に帰室した．

第 2 回術後経過：翌日頭部単純 CT, MRI にて血腫の増大や新規頭蓋内出血，梗塞認めなかった．しかし血腫周囲の脳浮腫が増悪，正中偏位も認めたため鎮静，挿管下に定位的血腫除去術を施行した．術翌日頭部単純 CT で血腫の減量と新規頭蓋内出血無きことを確認し鎮静を解除，抜管した．覚醒は良好で神経学的症状の悪化を認めなかった．術後 7 日目に DSA を行い，dAVF の消失(**Fig. 5A, B, D, E**)と静脈鬱滞の改善(**Fig. 5C, F**)を確認した．その後の CT でも再出血は認めず，正中偏位も改善した．軽度構音障害と左高度不全片麻痺は残存(MMT 上肢 1/5，下肢 3/5)したものの，意識清明，経口摂取可能な状態で血腫除去術後 20 日目に mRS4 でリハビリテーション病院に転院となった．

考察

静脈洞の閉塞性変化を伴った isolated type の TS-SS 部 dAVF に対する TVE の際には、閉塞静脈洞を通過して病変静脈洞に到達することが第一選択として試みられることが多く、同軸カテーテルを使用してサポート性を上げることの有用性が報告されている⁸⁾が、到達困難な場合もある。このような症例では、罹患静脈洞を小開頭下に直接穿刺されてきた⁹⁾。S 状静脈洞から頭蓋外への導出静脈である MEV を利用して罹患静脈洞に到達するといった報告は僅かながら認められ、MEV を直接穿刺して罹患静脈洞にアプローチした⁴⁾、皮下静脈を直接穿刺し MEV を経由して TVE を行った⁵⁾、といった報告がある。血管撮影室で経皮的に後頭部の MEV を直接穿刺する場合は、体位の問題や体表エコーのガイドを要するなど技術的に困難な場合も考えられ、いずれの方法でも侵襲度や技術的側面から、難易度は高くなる。一方で、経大腿静脈アプローチにより MEV を介して TVE を行ったという報告は認められない。

今回我々は唯一の流出路になっていた DCV を経大腿静脈的に經由することで容易に MEV に到達することができ、TVE を行い得た。特別な設備や機材は不要で、直接穿刺による静脈洞損傷の危険性もなく、低侵襲に治療を行うことができ有用であったと考えられる。これまでの解剖屍体による報告^{6,10)}によると、多くの症例で MEV は認められ(63-89%)、SS の中部より起始して頭蓋外へ導出し、皮下から後頭下三角までに及ぶ後頭下静脈叢を形成する。後頭下三角からは、前椎骨静脈を介して椎骨動脈周囲静脈叢に達するルートと、DCV へ流入する経路に分かれる。DCV は第 7 頸椎レベルより尾側で

椎骨静脈に流入し、鎖骨下静脈にないしは腕頭静脈に直接流入する
とされる。本症例では経大腿静脈的アプローチにより、鎖骨下静脈
から DCV を介して MEV に到達し得た。本症例では、複数存在する
罹患静脈洞が合流して MEV へ流出していることから、このルート
を介してのアプローチで全ての静脈洞にカテーテル誘導が可能であ
ると考えられた。このアプローチの利点としては、ブラインド操作
で閉塞静脈洞を開通させることなく、確実なロードマップ下に罹患
静脈洞にマイクロカテーテルを誘導出来ることである。しかしなが
ら、前述の如く MEV は半数以上の症例で存在するとされるが、
isolate された罹患静脈洞から MEV が導出静脈となっている症例は
限られており、後頭下静脈叢から中枢側の DCV が認められない場
合も本アプローチを考慮することは難しい。さらに静脈解剖はバリ
エーションが多いため、DCV の心臓側合流部の確認もアプローチを
成功させるためには重要であり、血管撮影上確認できるか否か検討
する必要がある(我々の症例では右鎖骨下静脈に合流)。本症例では
診断血管撮影の結果から、DCV が直線的でありその走行を明瞭に確
認できることから DCV-MEV 経路で罹患静脈洞に到達する方法を選
択した。多発性 dAVF は脳血管撮影上静脈の拡張や閉塞、皮質静脈
への逆流を示すことが多く、臨床的にも頭蓋内出血や神経学的脱落
症状を来すなど重篤化しやすいことが報告されている³⁾。本症例に
おいても、二つの病変は共に皮質静脈への逆流、静脈洞閉塞の所見
を伴っていたため、出血に関与した病変の判断が難しかった。本症
例では、血腫部位近傍の TBV, Vein of Labbe への逆流(**Fig. 2B, Fig.**
3E)により、出血が生じたと考えた。多発性 dAVF における脳出血

を引き起こす責任病変を考える上で、dAVF の形態分類も参考にすべきである。本症例では SSS 部は Borden type II, TS-SS 部は Borden type III であり、静脈洞閉塞を伴った Borden type III 病変の治療を先行させた。しかしながら、SSS 部 dAVF の皮質静脈逆流も脳出血発症に関与した可能性も否定できない。

dAVF の塞栓術と血腫除去術の順序及びタイミングは議論を要する。本症例では推定血腫量は 40ml と比較的多かったが、患者の意識状態が良かったこと、画像上血腫による mass effect が強くなかったことから二回の TVE を先行させ、静脈鬱滞を軽減させた後に血腫除去術を行った。塞栓術の前後で血腫の増大を認めず、動静脈瘻の完全閉塞により静脈鬱滞も軽減していたため、出血の危険性が低いと判断し低侵襲な定位的血腫除去術を選択することができた。血腫量が多く、意識障害を伴った症例では血腫除去術を先行させる必要があるが、この際には動静脈シャントによる静脈圧上昇により止血が難しくなることが予測される。また、開頭術野に罹患静脈洞が含まれる際には一期的に静脈洞穿刺による治療が追加できるが、本症例では出血部位と罹患静脈洞の関係からこのような選択は難しかったと考える。

結語

出血発症多発性 dAVF に対し二期的に TVE を施行し根治を得た。TS-SS 部の病変に対しては、唯一の流出路となっていた MEV を経大腿静脈的に経由して罹患静脈洞に到達することができ、TVE を行い得た。静脈洞の閉塞にかかわらず、本アプローチは罹患静脈洞へ

193 の到達ルートとして有用であると考えられた。

194

195 利益相反の開示

196 筆頭著者および共著者全員が本論文に関連し開示すべき利益相反は
197 ない。

198

199 文献

200 1) van Dijk JM, terBrugge KG, Willinsky RA, et al. Clinical
201 course of cranial dural arteriovenous fistulas with long-term
202 persistent cortical venous reflux. Stroke 2002; 33: 1233-1236.

203 2) Barnwell SL, Halbach VV, Dowd CF, et al. Multiple Dural
204 Arteriovenous Fistulas of the Cranium and Spine. AJNR Am J
205 Neuroradiol 1991; 12(3): 441-445.

206 3) van Dijk JM, terBrugge KG, Willinsky RA, et al. Multiplicity
207 of dural arteriovenous fistulas. J Neurosurg. 2002; 96(1):
208 76-78.

209 4) Rivet DJ, Goddard JK 3rd, Rich KM, et al. Percutaneous
210 transvenous embolization of a dural arteriovenous fistula
211 through a mastoid emissary vein. J Neurosurg. 2006; 105(4):
212 636-639.

213 5) Hiramatsu M, Sugiu K, Tokunaga K, et al. Percutaneous
214 transvenous embolization of transverse / sigmoid sinus dural
215 arteriovenous fistula through the mastoid emissary vein.
216 JNET 2009; 3: 112-117.

- 217 6) Reis CV, Deshmukh V, Zabramski JM, et al. Anatomy of the
218 mastoid emissary vein and venous system of the posterior neck
219 region: neurosurgical implications. *Neurosurgery*. 2007; 61(5
220 Suppl 2): 193-200; discussion 200-201.
- 221 7) Alvernia JE, Fraser K, Lanzino G. The occipital artery: a
222 microanatomical study. *Neurosurgery*. 2006; 58(1 Suppl):
223 ONS114-122; discussion ONS114-122.
- 224 8) Sugiu K, Tokunaga K, Nishida A, et al. Triple-catheter
225 technique in the transvenous coil embolization of an isolated
226 sinus dural arteriovenous fistula. *Neurosurgery*. 2007; 61(3
227 Suppl): 81-5; discussion 85.
- 228 9) Akioka N, Kuwayama N, Kuroda S Surgical transvenous
229 embolization by direct puncture of the superior sagittal sinus
230 for the treatment of dural arteriovenous fistula of the sinus
231 confluence. *JNET* 2015; 9: 78-83.
- 232 10) San Millan Ruiz D, Gailloud P, Rufenacht DA, et al. The
233 Craniocervical Venous System in Relation to Cerebral Venous
234 Drainage. *AJNR Am J Neuroradiol*. 2002; 23(9): 1500-1508.
235

Fig. 1

A: A head computed tomography scan performed at the time of admission shows intracranial hemorrhage in the area of right frontal lobe with minimal midline shift. **B, C:** T2-weighted images show multiple flow void signs on bilateral hemisphere. **D:** A magnetic resonance angiogram shows abnormal high signal area at the right transverse-sigmoid sinus (arrow).

Fig. 2

Right common carotid angiograms (**A:** anteroposterior view, **B:** lateral view, arterial phase, **C:** lateral view, venous phase) show multiple dural arteriovenous fistulae (dAVF). One locates at the right transverse-sigmoid sinus draining into the right temporobasal, mastoid emissary veins and the vein of Labbe, the other locates at the superior sagittal sinus draining into cortical veins. Note the arrowheads showing the cortical venous reflux toward the site of hematoma.

Fig. 3

A, B: Lateral view of the right occipital artery angiograms (**A:** arterial phase, **B:** late arterial phase) show the dural arteriovenous fistula of the transverse-sigmoid sinus associated with cortical venous reflux. Note the enlarged mastoid emissary vein draining into the deep cervical vein

(arrows). **C:** A right anterior oblique view of the right common carotid angiogram shows the deep cervical vein draining into the right subclavian vein (arrows). **D:** A non-subtracted fluoroscopic image shows the microcatheter advanced near the shunt through the mastoid emissary vein (arrows) and the first coil. A black arrow indicated the tip of the 4 french Cerulean catheter placed in the deep cervical vein. **E:** A lateral view of the right occipital artery angiogram during embolization shows remaining shunt into another sinus space associated with cortical venous reflux (black arrowhead; temporobasal vein, white arrowhead; vein of Labbe). **F:** The final coil configuration after the transvenous embolization via mastoid emissary vein.

Fig.4

A, B: Lateral view of the left common carotid angiograms (**A:** before, **B:** after embolization of superior sagittal sinus dural arteriovenous fistula) show complete obliteration of multiple dural arteriovenous fistulae. **C:** The final coil configuration after the transvenous embolization.

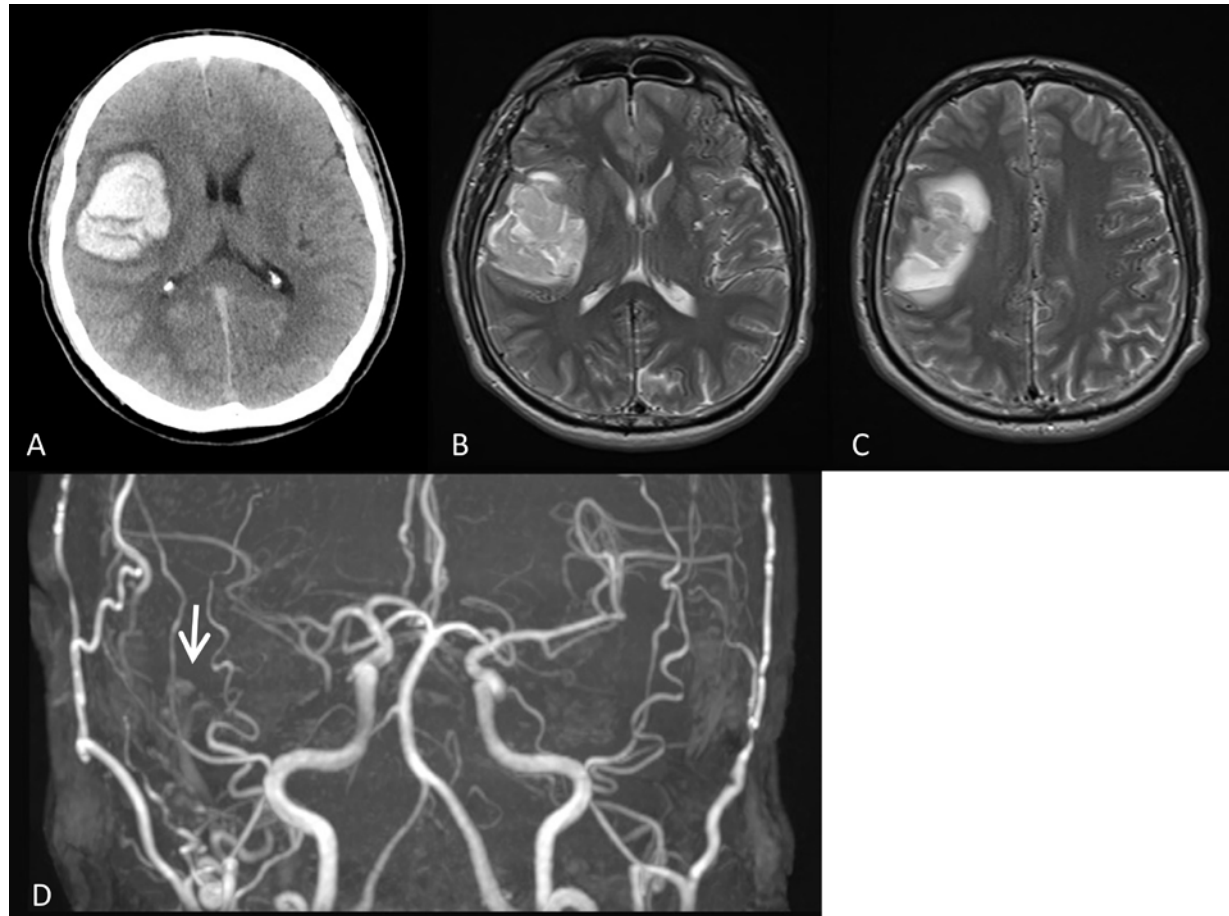
Fig. 5

Right common carotid angiograms (**A:** anteroposterior view, **B:** lateral view, arterial phase, **C:** lateral view, venous phase) and the left common carotid angiograms (**D:** anteroposterior view,

284 arterial phase, **E**: lateral view, arterial phase, **F**: lateral view,
285 venous phase) 1 week after the embolization show no recurrence
286 of fistulae.

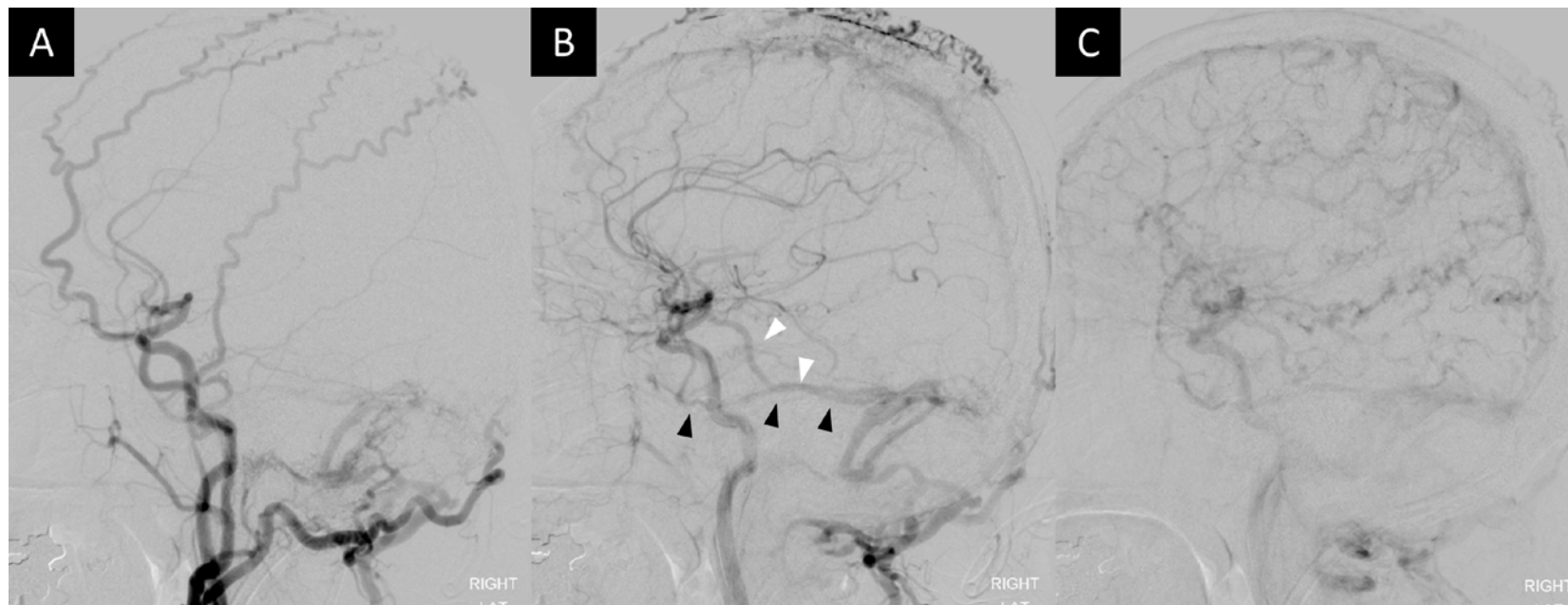
287

288 Fig.1



289 Fig.2

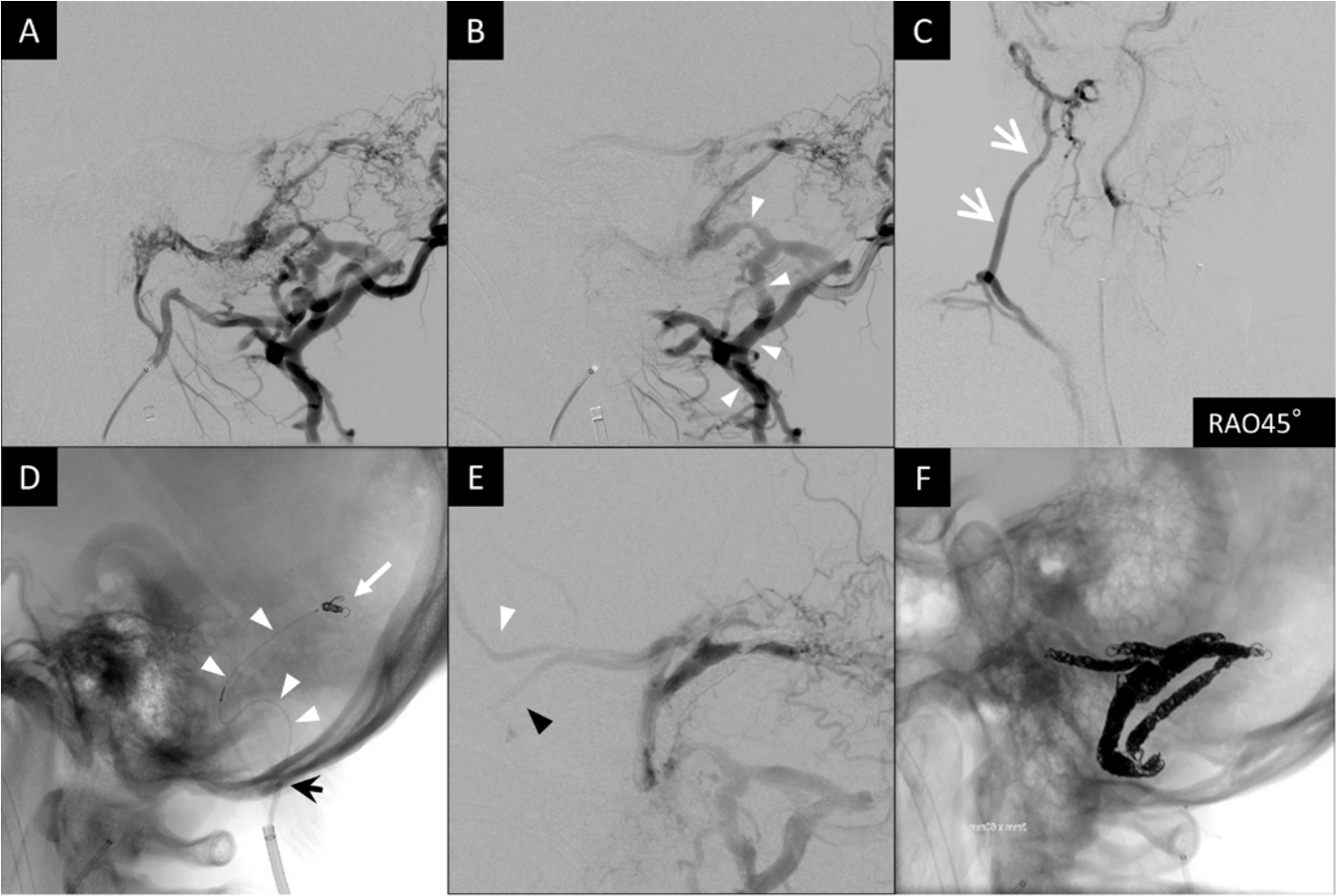
290



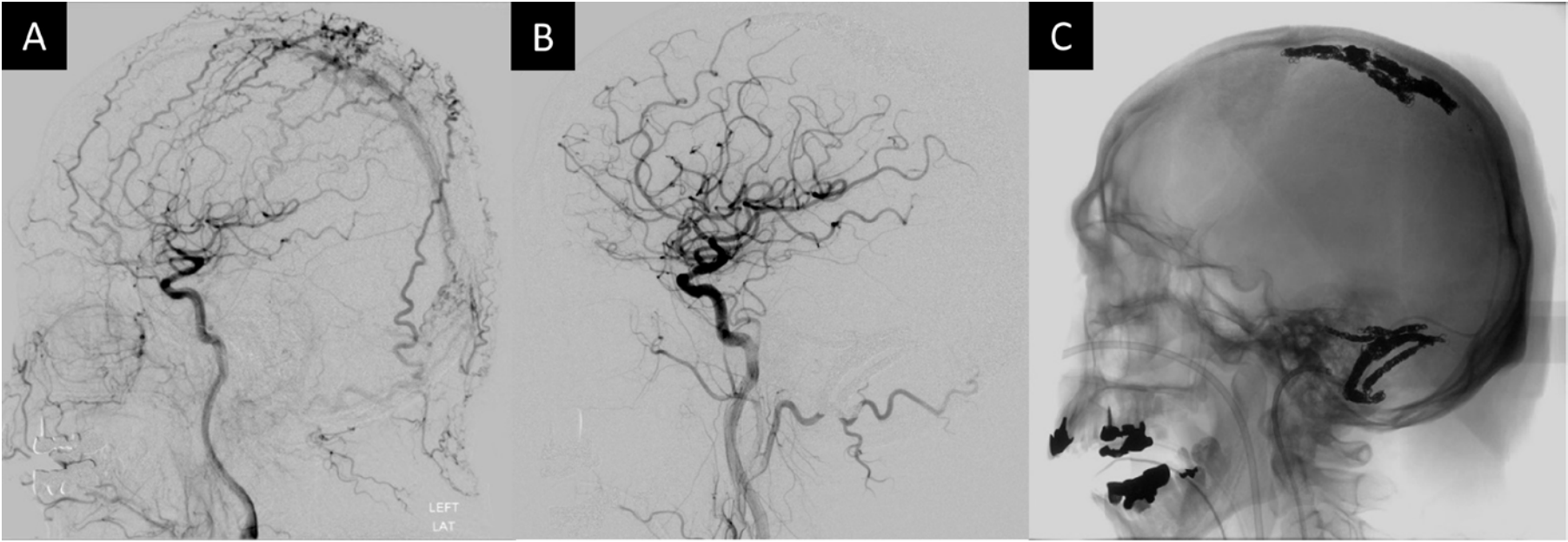
291

292

293



295 Fig.4



296

297

298

299 Fig.5

300

