

- 1) 論文種別：症例報告
- 2) 論文タイトル：硬膜動静脈瘻の流入動脈塞栓術中に医原性中硬膜動静脈瘻を生じた 1 例
- 3) 全員の著者名：北野貴也¹，松原俊二²，小川祐佳里²，木下景太²，高井洋樹²，平井聡²，原慶次郎²，松下展久²，戸井宏行²，宇野昌明²
- 4) 著者全員の所属施設・部署（論文が執筆された所属）
 - 1：川崎医科大学 脳卒中科
 - 2：同 脳神経外科
- 5) 連絡著者の氏名・連絡先：北野貴也，川崎医科大学脳卒中科，〒701-0192 岡山県倉敷市松島 577, 086-462-1111, takayakitano@med.kawasaki-m.ac.jp
- 6) キーワード 硬膜動静脈瘻，中硬膜動脈，医原性動静脈瘻
- 7) 宣言：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。

硬膜動静脈瘻の流入動脈塞栓術中に医原性中硬膜動静脈瘻を生じた 1 例

キーワード 硬膜動静脈瘻，中硬膜動脈，医原性動静脈瘻

和文要旨

【目的】横静脈洞の硬膜動静脈瘻に対して流入動脈塞栓術を施行中，医原性硬膜動静脈瘻が生じた 1 例を経験したので報告する．

【症例】66 歳，女性．突然に左側頭部痛と嘔気を自覚し，当院へ救急搬送された．頭部 CTにて左皮質下出血を認め，DSAで左横静脈洞部の硬膜動静脈瘻を認めた．中硬膜動脈経由で流入血管塞栓術を試みたが，術中のバルーン拡張により中硬膜動脈を損傷し，中硬膜動静脈瘻が出現した．直ちに瘻孔ごと中硬膜動脈を NBCA とコイルを用いて塞栓し，後遺症は術後も認めなかった．【結語】血管内治療中の流入動脈損傷による硬膜動静脈瘻を経験した．稀であるが注意すべき合併症であることを念頭に治療に臨む必要がある．

緒言

近年，脳血管内治療件数が増加しており，中硬膜動脈（middle meningeal artery; MMA）はその標的となることの多い血管である。頭部外傷により MMA が損傷された場合には急性硬膜外血腫が生じることがよく知られているが，血管内治療中の MMA 損傷による合併症の報告は稀である¹。今回，我々は横静脈洞部の硬膜動静脈瘻（dural arteriovenous fistula; DAVF）に対して MMA 経由で流入血管塞栓術中に MMA を損傷し，医原性硬膜動静脈瘻（iatrogenic dural arteriovenous fistula; i-DAVF）を生じた 1 例を経験したので報告する。

症例提示

症例：66 歳，女性。

現病歴：X 年 8 月上旬に突然左側頭部痛と嘔気を自覚し，当院を救急受診した。

既往歴：慢性頭痛，高血圧症。頭部外傷の既往なし。

薬歴：ピタバスタチン 2mg/日，ファモチジン 20mg/日。

家族歴・嗜好歴：特記すべき事項なし。

一般身体所見：血圧 150/90mmHg，心拍数 90/分，整。

神経学的所見：JCS：I-1，GCS：E4V5M6，不穏状態であった。脳神経に特記すべき異常を認めなかった。麻痺や感覚障害，失語は認めなかったが，右方向への注意障害を認めた。

画像結果：頭部単純 CT で左側頭後頭葉皮質下に約 25ml の血腫を認めた（図 1A）。頭部 MRA では明らかな異常血管の描出は確認出来なかったが（図 1B）。DSA にて横静脈洞（Transverse Sinus; TS）

近傍に DAVF を認めた。Sinus との直接交通はなく、流出路は皮質静脈のみであった。流入動脈は患側の MMA posterior convexity branch (PCB) と後頭動脈の硬膜枝で、シャントポイントは TS 上壁に存在する Borden type III, Lalwani type IV と診断した (図 2A,B,C,D)。

血管内治療： TS との交通がなく、経静脈的塞栓術は困難と考えられたため、低濃度 n-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA) で経動脈塞栓術 (transarterial embolization; TAE) を行う方針とした。全身麻酔下に右大腿動脈から 7Fr Roadmaster TH(グッドマン, 愛知) を左外頸動脈 (external carotid artery; ECA) 起始部に留置した。

標的血管として後頭動脈硬膜枝と MMA PCB が考えられた。診断撮影時に後頭動脈の選択に難渋したため、その硬膜枝遠位までの到達にはかなりの困難が予想された。しかし、MMA PCB は急峻な角度で分岐し、その起始部にはつづら折り状の蛇行が認められ、マイクロカテーテルの挿入は困難と考えられた。加えて、そこからシャントポイントまでにやや距離があり、NBCA で penetration することに困難が予想された。そこで、バルーンカテーテルである Pinnacle blue 27(東海メディカルプロダクツ, 愛知) を中間カテーテルに用いることで、マイクロカテーテルが MMA PCB に誘導できない場合には近位側を一時閉塞させて wedge 状態とし、塞栓物質をより遠位まで到達させようと考えた。Pinnacle blue27 と Carnelian Marvel Non Taper (以下 Marvel, 東海メディカルプロダクツ, 愛知) の同軸システムを ASAHI CHIKAI-14 200cm (朝日インテック, 東京) で左 MMA に誘導した。Pinnacle blue 27

は棘孔を超えて MMA horizontal segment に誘導された。Marvel は、MMA PCB の起始部の蛇行のためその MMA PCB 分岐部までしか誘導できなかった。そこからマイクロカテーテル造影を行うとシャントが良好に描出され、眼動脈や内頸動脈との吻合は認められなかった（図 3A）。潜在的な dangerous anastomosis の存在が懸念されたため、MMA PCB 分岐部より近位方向に逆流しないようにバルーンを拡張して wedge させることとした。また、MMA PCB 分岐部から anterior branch 方向へ NBCA が流入した場合にはただちに注入を中止することとした。その上で同部位から加温した 17% NBCA を動注することとした。

2 倍希釈した造影剤を 1ml のシリンジにとり、Pinnacle blue 27 のバルーンを透視下でごく軽度拡張させた（図 3B, C, D）。DSA 施行下に Marvel から NBCA を動注すると、NBCA は PCB に流入したが、シャントポイントまで至らず逆流し始めた。5 秒程度のポーズをおいて注入を繰り返したが、NBCA を先進させることが出来なかったため、Feeder occlusion で終了した（図 3E）。Pinnacle blue 27 のバルーンを収縮させ Carnelian MARVEL Non Taper を抜去した。

ところが、ECA に留置したガイディングカテーテルから造影を行うと様相が一変し、MMA PCB は閉塞できていたが、動脈相で左下錐体静脈洞（inferior petrosal sinus; IPS）や翼突静脈叢などが描出された。MMA の近傍に 2 本並走する静脈への逆流（tram-track sign）を認め、MMA horizontal segment 付近に瘻孔を有する MMAVF と診断した（図 4A,B）。NBCA 動注前の DSA では DAVF は認めら

れておらず、瘻孔の位置がバルーン近傍であったことから、バルーン過拡張による MMA の破裂と考えられた。ただちに Cone beam CT を撮像し硬膜外・硬膜下血腫などが無いことを確認した。Pinnacle blue 27 を抜去し、代わりに Renegade-18 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) を MMA horizontal segment に誘導した。同部位から pushable coil(Hilal, Cook, Bloomington, IN, USA)を 12 本挿入し、さらに coil 手前から 17%NBCA を動注した(図 4C)。これにより iatrogenic fistula は完全に閉塞された。(図 4D, E)

この後、本来の標的であった TS 近傍の DAVF を塞栓するため、後頭動脈の硬膜枝にマイクロカテーテルを誘導し、17%NBCA を動注した。Proximal occlusion ではあったが、シャント量は著減した。その後のフォローで 6 ヶ月間症状再燃なく経過している。

考察

MMAVF は、頭蓋骨内面の硬膜内を走行する MMA が損傷された結果、伴走する中硬膜静脈 (middle meningeal vein; MMV) との交通が生じて形成される。その多くは頭部外傷に伴って報告されており、頭部外傷に 1.8% の頻度で合併するとされ²、同じく MMA の損傷によって生じる急性硬膜外血腫と比較すると比較的稀である。外傷以外の原因として、開頭術後に医原性に生じた症例や³、原因が明らかでない自然発生例も少数報告されている⁴。今回我々が経験した MMAVF は、血管内治療中の合併症として生じたもので、非常に稀な 1 例であった。

外傷性に MMA が損傷された場合には硬膜外血腫を形成することが多いのに対し、本症例が AVF を呈した点は興味深い。MMA と

MMV は硬膜の Bone surface layer と頭蓋骨内板に挟まれて走行し^{5,6}、多くの外傷性硬膜外血腫が頭蓋骨骨折に伴って生じるとされる⁷。外傷の場合、骨折や大きな外力によって硬膜が頭蓋骨内板から一部剥離され、生じたスペースを中心として血腫が生じるのに対し、本症例のような動脈内腔からの損傷では、硬膜と頭蓋骨の密着が保たれかつ硬膜に損傷を来しにくいため、血腫を作らず動静脈瘻が生じたと考えられた。

1 回目の NBCA 注入後の DSA で突然に MMAVF が出現したことから、本例における MMAVF の原因は頭蓋内 MMA 内でのバルーン拡張による MMA の損傷であると考えられた。バルーンの拡張は透視下に十分な注意を払って行っていたが、バルーンの compliance が極めて高く少量の造影剤注入でも大きく径が変化する製品であったことや、頭蓋底の骨と重なって視認性が非常に低下していたこと、標的である MMA の血管径が細く拡張の確認が難しかったことなどが原因と思われた。事前に体外で拡張させてバルーン径を確認し、バルーン腔に接続するシリンジ内の造影剤を使用分のみに減量しておくといった予防策を講じていなかったことが反省点であった。また、最大径 6.3mm まで拡張できる本バルーンカテーテルは、MMA のような 1mm 程度の血管の中で拡張させること自体リスクが高く、推奨されたものではないと反省された。

MMAVF における drainer は、海綿静脈洞や矢状静脈洞、翼突静脈叢、蝶形骨頭頂静脈洞、架橋静脈、板間静脈などが知られており、Freckmann らは外傷性 MMAVF における drainer を 6 パターン

に分類した⁸。本例は、主として翼突静脈叢から海綿静脈洞と、板間静脈への流出が認められ、Freckmann らの分類の type III と type V が混在していたと考えられた。

MMAVF の症状としては拍動性耳鳴や結膜充血が報告されている⁹。Almefty らは、脳内出血やくも膜下出血で発症した 9 症例をまとめ、MMAVF は頭蓋内出血を来すリスクのある病態であると報告した⁴。また、慢性硬膜下血腫の再発に関与する場合があるとも報告されている¹⁰。一方で、自然消退した例も報告されており¹¹、その危険性は定まっていない。本例は全身麻酔中に生じた MMAVF であったため、症候性かどうかは不明であった。血管撮影からは high flow で自然治癒は期待できなかったこと、出血性合併症のリスクが存在したことと、医原性に術中生じたという背景を考慮し、治療適応と判断した。

本例では、MMAVF が生じた後すぐに塞栓術を行い、幸いなことに後遺症なく治療することが出来た。MMAVF の治療は直達手術と血管内治療があるが、侵襲性の低さから血管内治療によって行われることが増加している。塞栓の方法としては、今回我々も使用した NBCA のほか⁹、Onyx や Embosphere (Merit Medical, South Jordan, UT, USA) など他の塞栓物質の報告されている¹²。Almefty らは前述の報告の中で、MMAVF 9 例のうち 8 例に Onyx を使用して塞栓術を施行し、治癒を得たと報告した⁴。

血管内治療中に MMA を損傷して MMAVF が生じた報告は、我々が検索し得た範囲では Terada らによる 1 例のみで、髄膜腫の流入血管塞栓術中にマイクロガイドワイヤーが MMA を穿孔したこと

によるものであった¹。Teradaらはその報告において、MMAの高度な屈曲がその原因となったと考察していた。本例のような、バルーン拡張による中硬膜動脈の損傷の報告は渉猟した範囲ではなかった。Shiらは、DAVFに対して経動脈的塞栓術を施行する際に、バルーン(HyperForm; Medtronic, Minneapolis, MN, USA)を用いて近位側を遮断することの有効性を報告し、その利点としてシャント量の減少や、塞栓物質の逆流のコントロールの改善、いわゆる dangerous anastomosis への塞栓物質の流入の予防などを挙げた¹³。Scepter C(Microvention, Tustin, California, USA)を用いた同様な報告がなされており¹⁴、DAVF治療においてバルーンによる支援は選択枝の一つである。中硬膜動脈は塞栓術の際に標的となることが多い血管であるが、頭蓋内では細径であることに加え、中膜を欠くなどの組織学的特徴が知られているため¹⁵、MMA内でのバルーン拡張を行う際にはMMAの破裂や穿孔によるMMAVFが発生する危険性も念頭に置いておく必要がある。

結語

中硬膜動脈内でのバルーン拡張は血管損傷のリスクが伴うため、極めて慎重を要する。結果として中硬膜動静脈瘻を生じる場合がある。

利益相反の開示

本論文に関して、開示すべき利益相反なし。

参考文献

1. Terada T, Nakai E, Tsumoto T et al. Iatrogenic arteriovenous fistula of the middle meningeal artery caused during embolization for meningioma--case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 1997;37:677-680
2. Fincher EF. Arteriovenous fistula between the middle meningeal artery and the greater petrosal sinus; case report. *Annals of surgery*. 1951;133:886-888
3. Kim SW, Chae KS, Shim JH et al. Iatrogenic dural arteriovenous fistula after superficial temporal artery to middle cerebral artery anastomosis: A case report. *Korean journal of neurotrauma*. 2015;11:151-153
4. Almefty RO, Kalani MY, Ducruet AF et al. Middle meningeal arteriovenous fistulas: A rare and potentially high-risk dural arteriovenous fistula. *Surgical neurology international*. 2016;7:S219-222
5. Adeeb N, Martin M, Mortazavi R et al. The cranial dura mater: A review of its history, embryology, and anatomy. *Childs Nerv Syst*. 2012 Jun;28(6):827-37.
6. Protasoni M, Sangiorgi S, Cividini A et al. The collagenic architecture of human dura mater. *J Neurosurg*. 2011 Jun;114(6):1723-30.
7. Irie F, Brocque RL, Kenardy J et al. Epidemiology of traumatic epidural hematoma in young age. *J Trauma*. 2011 Oct;71(4):847-53.
8. Freckmann N, Sartor K, Herrmann HD. Traumatic arteriovenous fistulae of the middle meningeal artery and neighbouring veins or dural sinuses. *Acta neurochirurgica*. 1981;55:273-281
9. Minami H, Miki T, Kakita H et al.: Traumatic aneurysm of the middle meningeal artery presenting with traumatic middle meningeal arteriovenous fistula: a case report. *JNET* 2016; Vol.9; 84-89
10. Mewada T, Ohshima T, Yamamoto T et al. Usefulness of embolization for iatrogenic dural arteriovenous fistula associated with recurrent chronic subdural hematoma: A case report and literature review. *World neurosurgery*. 2016;92:584.e587-584.e510
11. Chandrashekar HS, Nagarajan K, Srikanth SG et al. Middle meningeal arteriovenous fistula

and its spontaneous closure. A case report and review of the literature. *Interventional neuroradiology : Journal of peritherapeutic neuroradiology, surgical procedures and related neurosciences*. 2007;13:173-178

12. Shim JH, Yoon SM, Shim JJ et al. A case of intraosseous dural arteriovenous fistulas involving diploic vein treated with transarterial onyx embolization. *Journal of Korean Neurosurgical Society*. 2011;50:260-263
13. Shi ZS, Loh Y, Duckwiler GR et al. Balloon-assisted transarterial embolization of intracranial dural arteriovenous fistulas. *Journal of neurosurgery*. 2009;110:921-928
14. Kim ST, Jeong HW, Seo J. Onyx embolization of dural arteriovenous fistula, using scepter c balloon catheter: A case report. *Neurointervention*. 2013;8:110-114
15. Hassler O. Medial defects in the meningeal arteries. *J Neurosurg* 1962; 19:337-340

Figure 1

Head CT shows subcortical hemorrhage in the left temporo-occipital lobe (A). Magnetic resonance angiography on admission demonstrates no clear evidence of dural arteriovenous fistula (B).

Figure 2

Left carotid artery angiograms. Anterior-posterior view (A, C) and lateral view (B, D). Black arrowheads show a parietal branch of middle meningeal artery. Black arrows disclose a neuromeningeal branch of occipital artery. White arrowheads shows left transverse sinus. Black circles show the shunting point of the dural arteriovenous fistula.

Figure 3

Super selective digital subtraction angiograms (lateral view) of middle meningeal artery anterior branch (A). White arrowheads show micro balloon catheter. A black arrowhead indicates the shunting point. White arrows show microcatheter located at the bifurcation of middle meningeal artery. Fluoroscopic images (Lateral view) just before (B) and after (C, D) balloon inflation. The white

painted area shows the inflated balloon. 17% n-butyl-2-cyanoacrylate was injected from the microcatheter under the proximal balloon occlusion (E).

Figure 4

Digital subtraction angiograms after the embolization. Anterior-posterior view (A, C, D) and lateral view (B, E). White arrows show middle meningeal artery feeding the iatrogenic fistula. Black lozenges indicate the shunting point. Black arrowheads show middle meningeal veins, black arrows show inferior petrosal sinus, and white arrows shows pterygoid plexus. As middle meningeal arteriovenous fistula was found, 17% n-butyl-2-cyanoacrylate was injected following coil (white lozenges) embolization to obliterate the fistula (C). The fistula completely disappeared (D, E).-

Fig.1

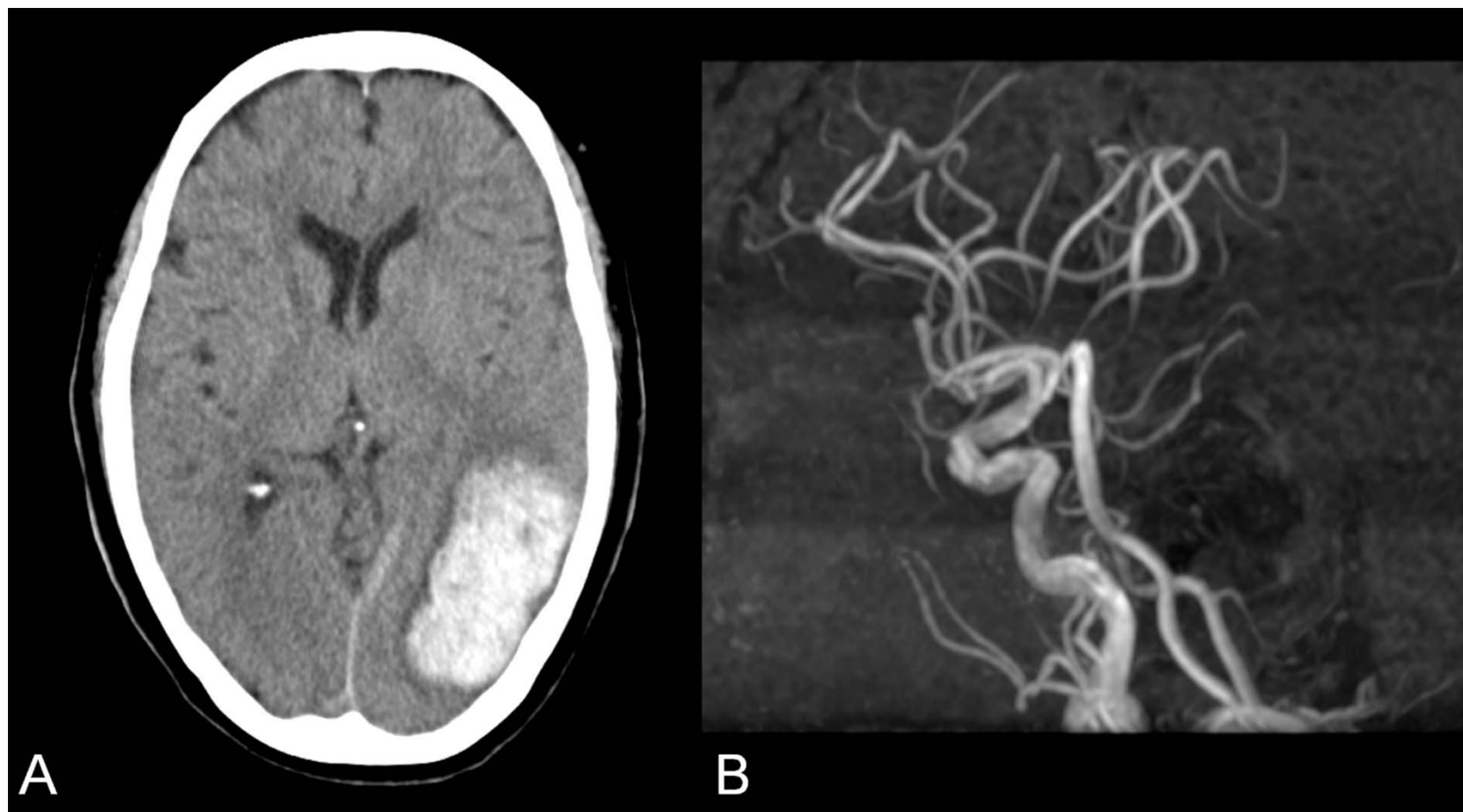


Fig.2

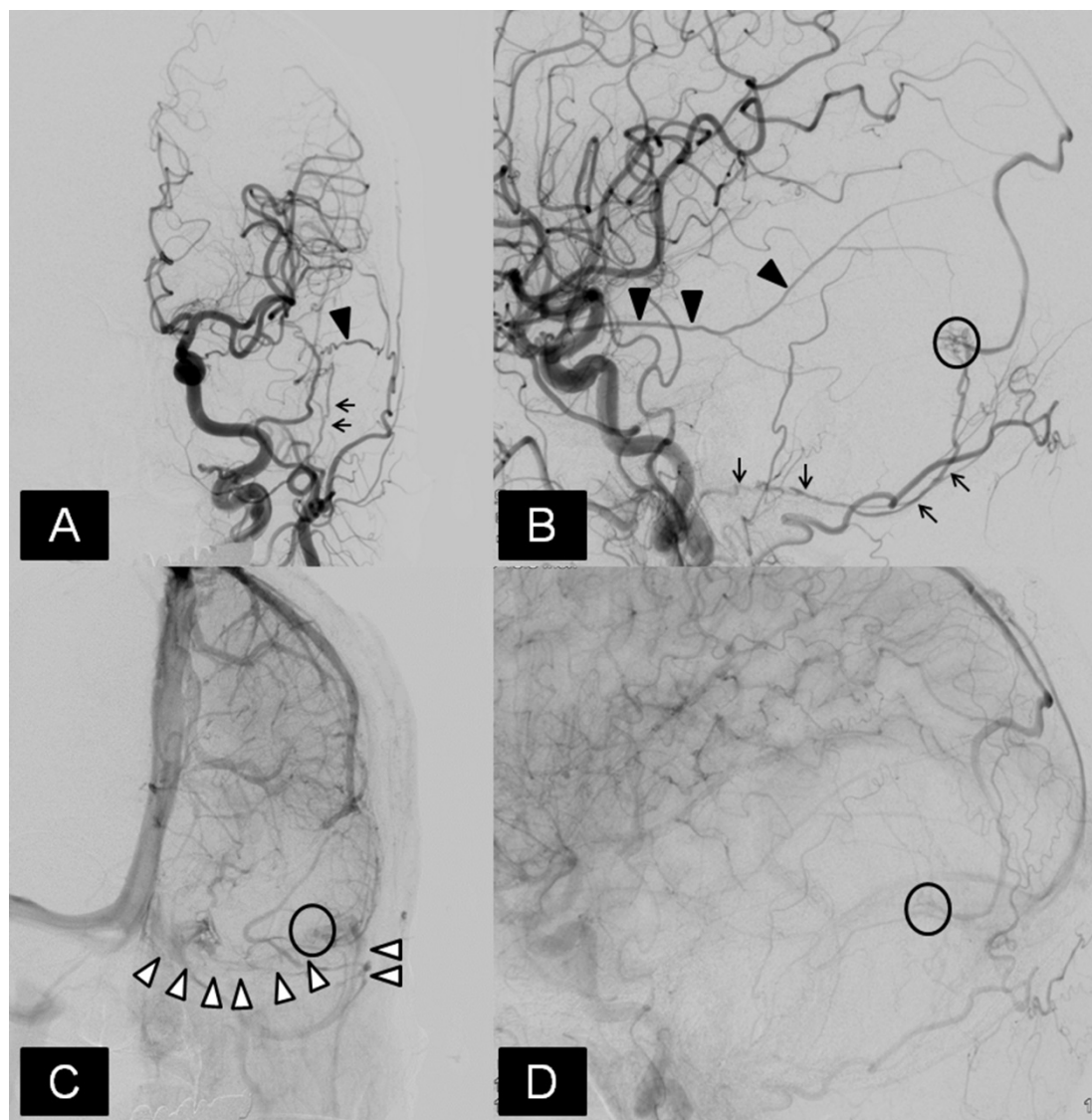


Fig.3

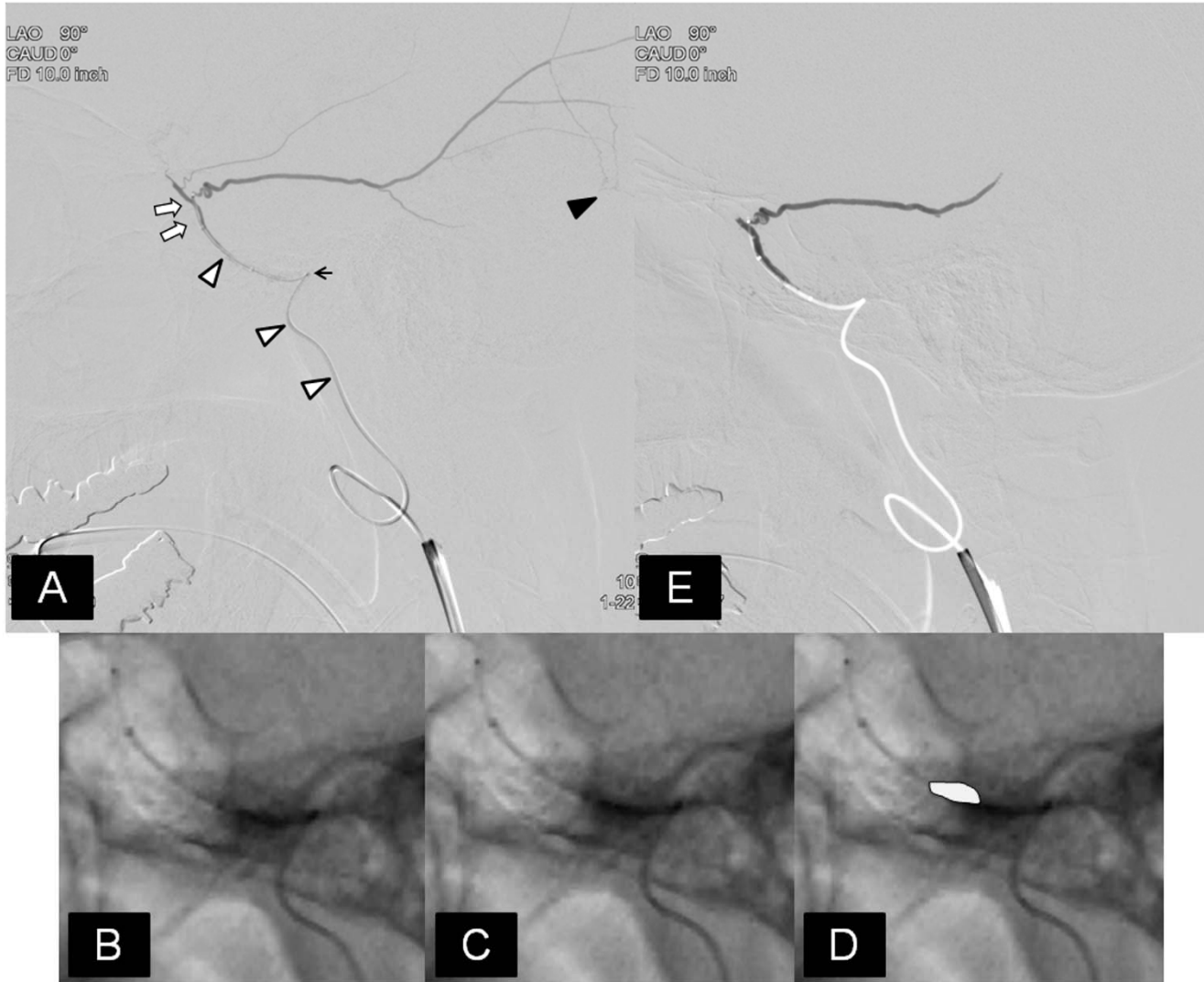


Fig.4

