

論文種別:テクニカルノート

論文タイトル:

複数バルーンアシストによる経動脈的Onyx塞栓術により治療し得た上矢状静脈洞部硬膜動静脈瘻の一例

山下 俊輔¹⁾ 藤田 敦史²⁾ 庄瀬 裕康¹⁾ 森下 暁二¹⁾ 相原 英夫¹⁾ 甲村 英二²⁾

¹⁾兵庫県立加古川医療センター脳神経外科, ²⁾神戸大学大学院医学研究科外科系講座脳

神経外科学分野

連絡著者の氏名・連絡先:

山下俊輔

兵庫県立加古川医療センター脳神経外科

〒675-8555 兵庫県加古川市神野町神野203

電話 +81-79-497-7000, FAX +81-79-438-8800

E-mail: shun_yama1128@yahoo.co.jp

キーワード: dural arteriovenous fistula, superior sagittal sinus, transarterial embolization, balloon-assisted embolization, Onyx

本論文を, 日本脳神経血管内治療学会 機関紙「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.

Objective

バルン付きガイディングカテーテル及びマイクロカテーテルによる血流コントロールを併用して Onyxを導出静脈まで十分に注入し得た上矢状静脈洞部硬膜動静脈瘻の一例を報告する。

Case Presentations

54歳男性, 4年前に皮質静脈逆流を伴う上矢状静脈洞部硬膜動静脈瘻を指摘されていたが無症候のため治療の希望はされず. 経過観察中に右側頭葉皮質下出血を発症し, 導出静脈の閉塞性変化を認めた. 両側外頸動脈及び右中硬膜動脈に留置した複数のバルンアシストを併用したOnyxによる経動脈的塞栓術を施行し, 完全閉塞が得られた. 治療に伴う合併症を認めず, 治療8ヶ月後のDSAで再発を認めなかった.

Conclusion

Onyx を導出静脈まで十分に注入するために, バルンアシスト下の Onyx 塞栓術は有用である.

緒言:

頭蓋内硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula: dAVF) は, 頭蓋内血管奇形の 10%~15% を占める比較的稀な疾患であり, その発生頻度は 0.16~0.51 人/10 万人程度と報告されている^{1,2)}. 上矢状静脈洞 (Superior sagittal sinus: SSS) 部に発生する dAVF の発生頻度は頭蓋内 dAVF の 2.3%~12% とされている^{1,3)}. SSS 部に発生する dAVF は静脈洞に流出するこ

となく直接皮質静脈に逆流するものや、流出静脈洞が正常静脈灌流を受けるものもあり、経静脈的塞栓術(transvenous embolization:TVE)が困難なことが多く、手術による皮質静脈離断の報告も多い⁴⁾。血管内治療では主として液体塞栓物質(n-butyl-2-cyanoacrylate: NBCA)を用いた経動脈的塞栓術(transarterial embolization:TAE)により治療されてきたが、最近ではOnyxを使用したTAEによる治療での報告が散見される^{5,6)}。液体塞栓物質によるTAEで根治を得るには、塞栓物質をシャント及び導出静脈まで十分に浸透させることが必要であり、注入血管以外からの血流コントロールも重要である。他の栄養動脈からの血流により塞栓物質が早期に硬化してしまったり、導出静脈に塞栓物質が飛散しないようにコントロールして注入することが重要であり、バルンアシストによる血流コントロールを併用した塞栓術の報告が認められる^{5,7,8,9)}。今回、我々はバルン付きガイディングカテーテルとバルン付きマイクロカテーテルによる血流コントロールを併用したOnyx塞栓術により良好な塞栓を得られた症例を経験したので、その有用性を報告する。

症例呈示:

患者 54歳 男性

既往歴 高血圧, 胆嚢摘出術後(2015年3月)

現病歴 1992年頃に浮動感を自覚し、近医で頭部 magnetic resonance imaging (MRI)を撮影して血管奇形の疑いを指摘されたが、その後通院・治療は行わず。2012年10月に浮動感、頭痛を主訴に近医受診し、頭部MRIで再び異常が疑われたため当科に紹介となり、精査目的

で入院し脳血管撮影(digital subtraction angiography: DSA)を施行した。総頸動脈撮影では、両側の中硬膜動脈(middle meningeal artery:MMA)を流入動脈とし、SSS に接してシャントポイントが認められ、右大脳半球の皮質静脈へ直接逆流する SSS 部 dAVF を認めた(Fig. 1A, B)。静脈相においては、SSS は正常静脈灌流を受けた順行性血流であった。10 年以上前から指摘されていた病変であり、無症候性であることから本人は積極的な治療を希望されず、外来での経過観察となった。しかし、その後は次第に不定期での受診となり、もともと高血圧に対して内服されていた降圧薬を自己中断していた。2016 年 4 月 14 日強い頭痛を主訴に当院救急外来を受診、頭部 computed tomography (CT)にて異常が認められ、緊急入院となった。

入院時神経学的・身体所見 意識清明、左上下肢の不全片麻痺 manual muscle testing (MMT) 4/5 を認めた。

神経放射線学的所見 頭部 CT で右側頭葉に皮質下出血を認めた(Fig. 1 C)。出血源精査目的で施行した DSA では前回同様、両側 MMA を流入動脈とする SSS に接する dAVF を認め、右大脳半球への皮質静脈逆流が認められた。前回の血管撮影(Fig. 1 A)と比較すると、右大脳半球へ逆流する皮質静脈の 1 本の分枝が消失し、血腫に接する静脈瘤の拡大が認められた(Fig. 2 C)。

入院後経過 皮質下出血はその血腫量から保存的加療を行った。早期よりリハビリテーションを行い、麻痺は速やかに改善したため入院 7 日目に独歩自宅退院となった。

脳血管撮影の結果から、皮質静脈逆流の一部の血管が血栓化したことにより、残存した皮質

静脈逆流に負荷がかかり、皮質下出血を引き起こした可能性が考えられた。症候性となったことで、dAVFに対する積極的治療の必要性を改めて説明した。静脈洞と関係のないdAVFであり、TVEでは治療困難と考えられたため、液体塞栓物質を用いたTAEを計画し、比較的長時間にわたり十分量の塞栓物質を注入することが出来るOnyxを使用する方針とした。

血管内治療 両側のMMAから栄養される比較的血流の早いdAVFであったため、両側の外頸動脈にバルン付きガイディングカテーテルを留置してproximal flow controlを行い、さらに液体塞栓物質を注入する右MMA posterior branchにScepter C 4mm x 10mm (Micro Vention TERUMO, Tustin, CA, USA)を留置し、早期のplug形成を促してOnyxを注入する方針とした。

全身麻酔導入後に両側大腿動脈から7Fr 80cm Shuttle sheath (Cook Medical, Bloomington, IN, USA)を両側総頸動脈にそれぞれ留置した。ホスフェニトイン750mg、プレドニゾロン500mgを投与し、ヘパリン4000単位を静脈内投与、以後1000単位/時を持続静注した。7Fr Optimo (東海メディカルプロダクツ, 愛知)を左右総頸動脈へ留置し、右総頸動脈撮影(Fig. 2 A, B, C), 左外頸動脈撮影(Fig. 2 D, E, F)を行い、dAVFが前回同様に両側のMMAを流入動脈とし、皮質静脈を導出静脈としていることを確認した。さらに両側外頸動脈、後頭動脈分岐直後まで進めた2本の7Fr Optimoから同時撮影を行い、4本のMMAとシャントポイントが描出できるWaters方向をワーキングアングルとし(Fig. 3 A), ScepterをAsahi Chikai 14(朝日インテック, 愛知)を用いて右MMA posterior branchのシャント近傍に留置(Fig. 3 A 矢印)した。Scepterからの撮影(Figure 3 B)でカテーテル先端の位置を確認し、Scepterバルンを拡張した状態で

DSAを行った (Figure 3 C). Scepterバルンにより, カテーテル以遠の造影剤の停滞が認められ, Onyx注入血管の血流コントロールは良好であることが確認されたが, 導出静脈内では他のMMA分枝からの流入血流によるlaminar flowが明らかであった. Scepter (Figure 3 D, 矢印)バルンにOptimo (Figure 3 D, 矢頭)バルンの拡張を追加すると, 透視下で導出静脈内で造影剤が停滞する所見が得られたことより, シャントに流入する血流のコントロールが出来ていると考えた. Onyx注入は両側のOptimoとScepterのバルンを拡張させた状態で行った. Onyx34をScepter死腔分 (0.44ml)にほぼ等しい量(0.4ml)を注入し, Onyx18へ変更しplug and push法を用いて注入した. Onyxはわずかにバルン方向に逆流するも, plug形成後はすぐに前進し始め, シャント及び導出静脈まで十分に浸透するまで注入 (総計2.26ml)して閉塞した (Fig. 3 E). Scepterのバルンを解除した後にカテーテルを抜去したが, カテーテルトラップなく抜去し得た. 両側のOptimoバルンを解除した後に, 両側総頸動脈撮影 (Fig. 4 A, B, C)を行い, 病変の消失及びSSSの開通が良好であることを確認し, 手術を終了した.

術後経過 術後に新たな神経脱落症状の出現を認めず経過し, 術後5日目に独歩自宅退院となった. 術後1ヶ月半後のMRIでは拡張蛇行した導出静脈のflow voidは消失しており, 術後8ヶ月に行ったDSAで再発は認めていない.

考察:

dAVFにおいて皮質静脈への逆流は、aggressiveな臨床経過の危険因子とされている¹⁰⁾。多くのSSS部dAVFはaggressiveな病変であり、260例の頭蓋内dAVFの治療を報告したGrossら³⁾のシリーズでは、32例のSSS部dAVFが検討されており、94%が皮質静脈への逆流を伴い、41%が出血発症であった³⁾。そのため、SSS部dAVFに対しては積極的な治療が必要となることが多く、開頭手術、血管内治療、放射線治療もしくはこれらの複合治療が行われてきた^{3,4)}。直達手術としては古くから手術による導出静脈離断がなされており、高い閉塞率が報告されている⁴⁾。本症例のようなnon-sinus typeに対する血管内治療としては液体塞栓物質によるTAEが中心となり、近年ではOnyxによるTAEの報告も散見される^{3,5,6)}。前述のGrossら³⁾のシリーズにおいても、Onyx導入によりSSS部dAVFに対するTAEでの閉塞率は60%から82%に上昇し、追加で手術加療を行う割合も14%から8%へ減少したと報告している。

液体塞栓物質でのTAEはNBCAを用いた報告が多いが、カテーテル接着性の問題から長時間の注入には適しておらず、導出静脈まで至らない不完全な注入であればdAVFは再発する¹⁰⁾。一方でOnyxはカテーテル接着性がなく長時間の注入が可能であり、導出静脈まで十分な注入を行える利点を有していることから治療報告が増えている³⁾。液体塞栓物質を用いた根治的TAEを行うには、導出静脈に十分塞栓物質が到達する前に意図しない硬化を生じさせないために、注入血管及びシャント付近に流入してくる血管からの血流コントロールが重要である。このための工夫として、バルン付きマイクロカテーテルの使用が考案され、dAVFに対する

Onyx塞栓術の際の有用性が報告されている^{5,8,9}。Onyx塞栓術においてバルン付きマイクロカテーテルを用いる利点としては、Onyx注入の際のplugの作成が短くて済むため透視時間や手術時間の短縮につながることや、注入血管の血流コントロールのためのsecond catheterが必要ないため、手技も煩雑にならないことなどが報告されている^{5,7,8,9}。一方で、バルン付きマイクロカテーテルはその製品構造上からOnyx塞栓術で頻用されるマラソンカテーテルと比較して太径で硬いことは留意せねばならない。本症例では、よりcrossing profileの小さいScepter C (2.1 French: Fr)を用いたが(Scepter XCは2.6 Fr)、マラソンカテーテルの先端外径(1.5 Fr)と比較するとよりシャントに近づくために遠位に誘導することが難しくなることは明らかである。屈曲蛇行したMMAは頭蓋内血管と異なり、ガイドワイヤーで血管を直線化したりすることは困難であり、このような太径のデバイスを誘導する際の合併症として、留置血管に血管解離を生じさせたり、血管破裂を引き起こす等の合併症が報告されている^{5,7,8,9}。また、Scepterを遠位に誘導出来ずに、近位からOnyx塞栓術を行った場合は、シャント直前にマラソンカテーテルを誘導して塞栓し得た場合と比較すると広範囲に不必要な血管を塞栓することになり、危険な吻合を介した塞栓物質迷入の原因となり得る。われわれの症例では、MMAが非常に発達して十分な血管径を有していたことから、比較的容易にシャント直前までScepterを誘導することが可能であったが、細いMMAにはScepterを無理に進めることは避けるべきである。

OnyxによるTAEはNBCAによるTAEと比べると高い閉塞率が報告されている一方で、長期的に見た場合に再発が報告されている。Ambekarら¹¹⁾は、Onyxにて根治的TAEを行い、血管撮

影上「治癒」した症例の経過観察を報告しているが、平均14ヶ月の経過で、14.3%の症例で血管撮影上の再発があったと報告している。再発に関わる因子として、シャント+導出静脈まで十分に塞栓物質が浸透できないことや導出静脈の完全閉塞を得られていないことなどをあげており、再発は治療後1年以内に起こることが多いと報告している。我々は、既報のバルン付きマイクロカテーテルでのTAEの際に、ガイディングカテーテルにもバルン付きガイディングを用いることで、以下のような利点があると考えた。外頸動脈に留置したバルン付きガイディングカテーテル(Optimo)により両側MMAの血流がコントロールされ、Onyxがシャントから導出静脈内に進み始めた時に、これらの栄養動脈からの血流により断片化して静脈深部に飛散するのを防ぐことができる。このため、導出静脈内に安定してOnyxを重ねていくことが可能であるという点である。Figure 3 Cで提示したように、Scepterバルンのみであれば、Onyxが導出静脈へ進み出した時には、他の栄養動脈からの血流によりコントロールが難しかったと考える。外頸動脈系の血流コントロールを行わず、Onyxが導出静脈に流入した時点でpauseを設けて繰り返す通常の注入方法でも可能であるが、我々の方法ではより安定した注入が可能であると考えられた。Scepterバルンを留置した右MMA posterior branch以外の両側MMAからの血流は外頸動脈に留置したOptimoバルンでコントロールができていることから、塞栓術後半では栄養動脈にもOnyxが逆流しやすくなる利点もある。Onyxの特性として、注入血管以外の栄養動脈塞栓を併用せずとも比較的これらの血管まで塞栓物質が浸透するとされるが、Ambekarら¹¹⁾の報告した高い再発率を考えると十分な血流コントロールを行いTAEを行う我々の方法により、

Onyxをシャント+導出静脈, さらに栄養動脈への逆流まで注入することができ, 再発リスクを減少させることに寄与すると考えられた. 一方で, バルン付きガイディングカテーテル使用に関しては以下のような欠点も考えられる. 本症例では7Frガイディングカテーテルを用いたが, 内腔径の問題から中間カテーテルを用いると造影が出来なくなってしまう. 高度な屈曲蛇行を呈する栄養血管へのアプローチの際には中間カテーテルのサポートが必要になる場合があるが, Onyx注入中のコントロール撮影は必要であり, このような症例では使用が難しい. 本症例では診断血管撮影で後頭動脈 (occipital artery: OA) の関与が認められなかったため, Optimoバルン留置部位はOA遠位部とした. SSS部dAVFは両側浅側頭動脈だけでなく両側OAが栄養動脈となることもあり, そのような症例ではOA起始部にOptimoバルンを留置することで良好な血流コントロールを得ることが出来ると考えられるが, OA分岐部と外頸動脈起始部との関係から必ずしもバルンが安定して留置できるとも限らない場合もある.

現時点では, dAVFに対するOnyxによるTAEの長期的な再発率の報告は少なく, 今後症例の蓄積が必要であり, 本症例でも長期的なフォローが重要であると考えられる. また, 本邦では本稿執筆時点で硬膜動静脈瘻に対するOnyx使用は保険未承認であり, 治療に際しては十分なインフォームドコンセントを要する点も留意しなければならない.

本症例は発見された時点では無症候性であったが, 皮質静脈逆流を有するdAVFと診断されて四年後に出血した. 出血発症時には導出静脈の血栓化によると思われる変化が認めら

れ(Fig. 1 A, 2 C), 流出路の負担が増加したことが出血を惹起した可能性が考えられた. 近年, dAVFの自然歴に関する様々な報告がなされ, 皮質静脈逆流を有する症例でも無症候性病変の出血率はこれまで考えられていたよりも少ないということが新しい知見として注目されている. Strome ら¹²⁾のシリーズでは, 症候性病変の年間出血率が18.2%であったのに対して, 無症候性病変の年間出血率は5.9%と報告されており, Södermanら¹³⁾のシリーズでは出血の既往がある患者では3/32例で再出血を認め, 出血の既往がない患者では1/53例で出血を認めたと報告している. Leeら¹⁴⁾により2015年に発表されたガイドラインにおいても, 前述の報告を引用して皮質静脈への逆流を有する症例でも出血発症症例の以後の年間出血率(7.4-7.6%)と比較して, 無症候性病変の年間出血率(1.4-1.5%)が低いことが示されており, 皮質静脈逆流の所見単独だけでは本疾患の自然歴を捕らえることの難しさが述べられている. 本症例で認められた流出路の変化は, 無症候性であっても危険な因子であると考えられ, 今後詳細な検討がなされるに従い, 更なる自然歴の理解につながるのではないかと考えられた.

結語:

出血発症の上矢状静脈洞部硬膜動静脈瘻に対して, 複数バルンを用いた血流コントロール下に経動脈的 Onyx 塞栓術により治癒し得た1例を報告した. 血流コントロールにより Onyx 注入の早い段階から良好な注入コントロールが得られ, バルンアシストによる Onyx 注入は有用な方法であると考えられた.

利益相反の開示:

本論文に関して、筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

文献:

1. Piippo A, Niemela M, Porta JV, et al.Characteristics and long-term outcome of 251 patients with dural arteriovenous fistulas in a defined population.J Neurosurgery 2013; 118:923-934
2. Al-Shahi R, Bhattacharya JJ, Currie DG,et al.Prospective,Population-Based Detection of Intracranial Vascular Malformations in Adults.Stroke 2003;34:1163-1169,2003
3. Gross BA, Albuquerque FC, Moon K, et al.Evolution of treatment and a detailed analysis of occlusion,recurrence,and clinical outcomes in an endovascular library of 260 dural arteriovenous fistulas.J neurosurgery published online on 2 Sep,2016:1-10
4. Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB,et al.Treatment of Dural Arteriovenous Malformations Involving the Superior Sagittal Sinus.A JNR 1988;9: 337-343
5. Kim JW, Kim BM, Park KY, et al.Onyx Embolization for Isolated Type Dural Arteriovenous Fistula Using a Dual-Lumen Ballon Catheter.Neurosurgery 2016; 78:627-636

6. Chong BW, Demaerschalk BM. Unusual Presentation of Dural Arteriovenous Fistula of the Superior Sagittal Sinus and Single Modality Therapy with Onyx. *Radiology Case Reports* 2008;3:158
7. Jagadeesan BD, Grigoryan M, Hassan AE, et al. Endovascular Balloon-Assisted Embolization of Intracranial and Cervical Arteriovenous Malformations Using Dual-Lumen Coaxial Balloon Microcatheters and Onyx: Initial Experience. *Neurosurgery* 2013 73[ONS Suppl 2]:ons238-ons243
8. Chiu AHY, Grace AW, Wenderoth JD. Double-lumen arterial balloon catheter technique for Onyx embolization of dural arteriovenous fistulas: initial experience. *J Neurointervent Surg* 2014;6:400-403
9. 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
10. Sugiu K, Hiramatsu M, Tokunaga K, et al. Intra-cranial Dural Arteriovenous Fistula: Classification and Treatment. *Jpn J Neurosurg* 2013;22:37-43
11. Ambekar S, Gaynor BG, Peterson EC, et al. Long-term angiographic results of endovascularly “cured” intracranial dural arteriovenous fistulas. *J Neurosurg* 2016; 124:1123-1127

12. Storm RG, Botros JA, Refai DR, et al. Cranial Dural Arteriovenous Fistulae. Asymptomatic Cortical Venous Drainage Portends Less Aggressive Clinical Course. *Neurosurgery* 2009;64:241-248
13. Söderman M, Pavic L, Edner G, et al. Natural History of Dural Arteriovenous Shunts. *Stroke* 2008;39:1735-1739
14. Lee S-K, Hetts SW, Halbach V, et al. Standard and Guidelines: Intracranial Dural Arteriovenous Shunts. *J NeuroIntervent Surg* 2015;0:1-8

Figure 1

Conventional digital subtraction angiography obtained four years prior to hemorrhagic presentation. A lateral view of right common carotid angiogram (late arterial phase: A) and an anterior-posterior view of left common carotid angiogram (B) show a dural arteriovenous fistula adjacent to the superior sagittal sinus fed by bilateral middle meningeal arteries. Note the elongated multiple cortical venous reflux into the right front-parietal lobe. A CT scan obtained at admission (C) shows the intracranial hemorrhage at the right temporal lobe.

Figure 2

Serial right common carotid angiograms (anterior-posterior view: A, lateral view of arterial phase: B and late arterial phase: C) and left external carotid angiograms (anterior-posterior

view of early arterial phase: D and late arterial phase: E, lateral view: F) show a dural arteriovenous fistula adjacent to the superior sagittal sinus associated with the cortical venous reflux.

Figure 3

A caudal view of DSA (A) obtained by simultaneous bilateral external carotid artery injections shows the dural arteriovenous fistula directly draining into the cortical vein. Note the Scepter microcatheter (arrows) advanced into the right middle meningeal artery. A selective injection from Scepter microcatheter (B) shows the fistulous point and draining vein. Another injection (C) after inflation of Scepter balloon shows apparent stasis of contrast media around the tip of catheter, however, residual flow from another meningeal feeders result in rapid washout of the contrast media in the draining vein. A non-subtracted image (D) obtained at just after starting the injection of Onyx. Note inflated Scepter balloon (arrow) in the middle meningeal artery and bilateral Optimo balloons (arrow heads) placed at the external carotid arteries. A non-subtracted image (E) obtained at the end of Onyx injection shows minimal reflux toward the tip of the microcatheter.

Figure 4

Lateral view of right common carotid angiograms (arterial phase: A, venous phase: B) show complete obliteration of the dural arteriovenous fistula with the patent superior sagittal sinus.

An anterior view of left common angiogram (C) also show the no residual filling around the superior sagittal sinus.

Fig.1

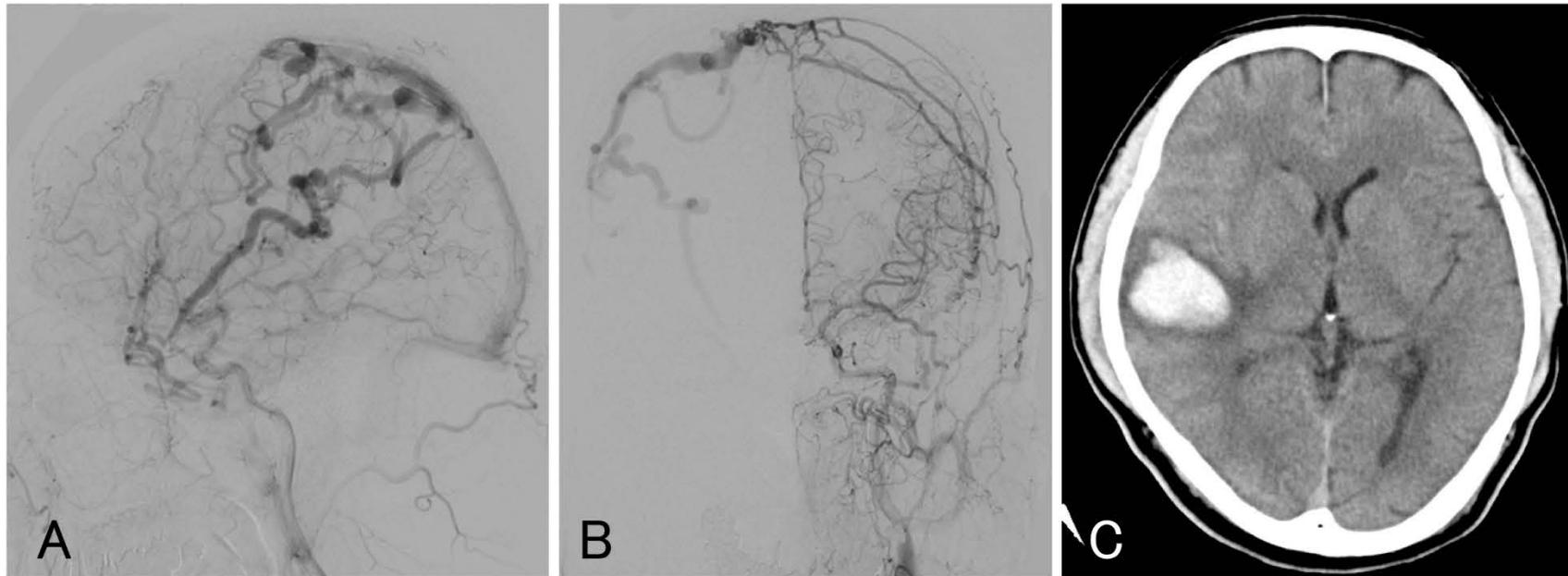


Fig.2

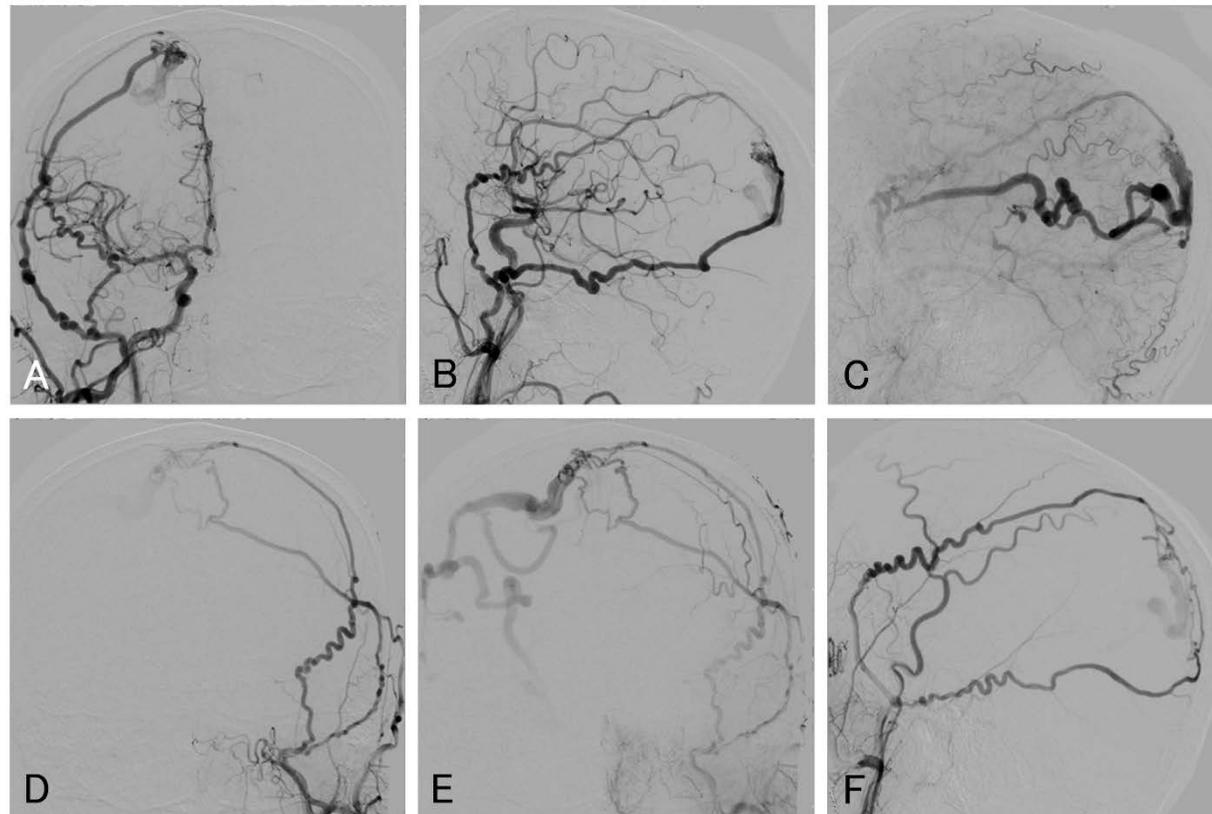


Fig.3

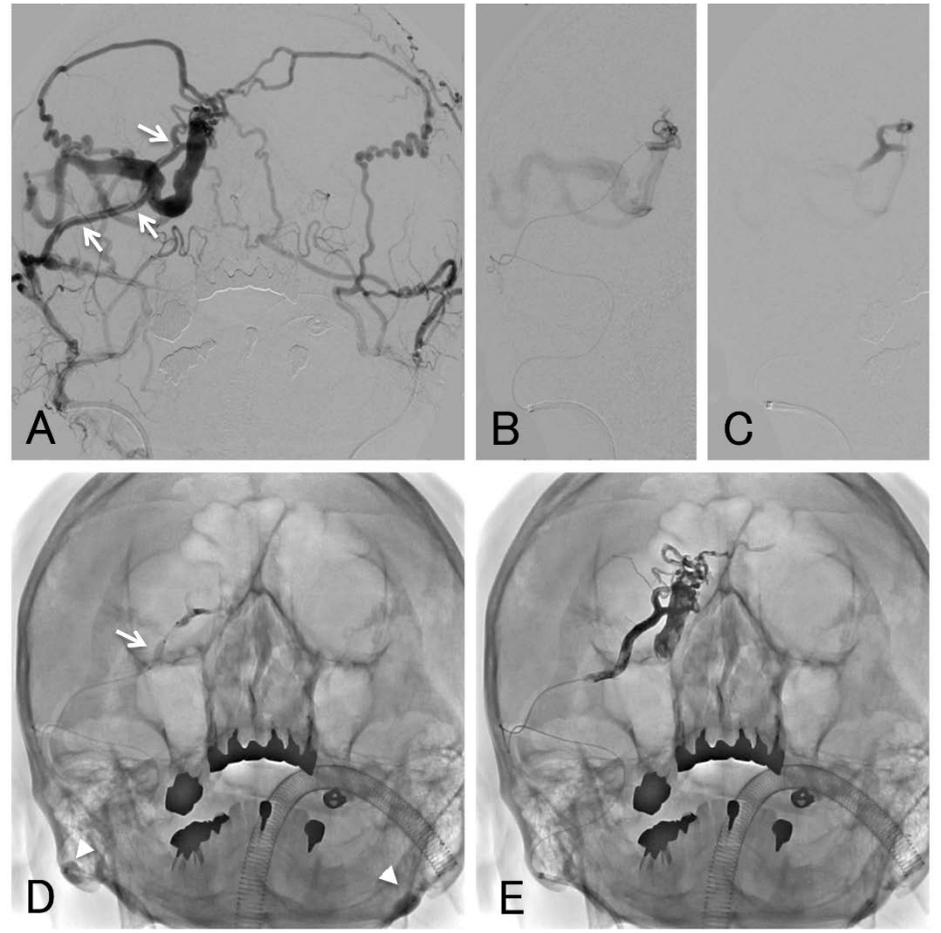


Fig.4

