

論文種別:テクニカルノート

論文タイトル:

異なるレベルのsegmental arteryに留置したバルンのアシスト下で経動脈的塞栓術を施行した  
脊髄硬膜動静脈瘻の1例

全員の著者名:

山川 皓, 藤田 敦史, 田中 潤, 甲田 将章, 細田 弘吉, 甲村 英二

著者全員の所属施設・部署:

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:

山川 皓

神戸大学医学部 脳神経外科

〒650-0017 兵庫県神戸市中央区楠町7丁目5-2

Tel:+81 78 382 5966

Fax:+81 78 382 5979

E-mail: ayamakawa66@yahoo.co.jp

キーワード:

spinal dural arteriovenous fistula, transarterial embolization, balloon assist, image fusion

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。

異なるレベルのsegmental arteryに留置したバルンのアシスト下で経動脈的塞栓術を施行した  
脊髄硬膜動静脈瘻の1例

## 和文要旨:

### 目的

多椎間からの栄養動脈が関与する脊髄硬膜動静脈瘻に対し, NBCAを注入する血管以外の  
栄養動脈の血流をバルンでコントロールした上で経動脈的塞栓術を行い, NBCAの良好な  
penetrationにより完全閉塞が得られた症例を経験したので報告する.

### 症例

57歳, 男性. 進行性歩行障害で発症. DSAで右第6, 7, 8肋間動脈から栄養される病変を認め  
た. 右第7肋間からの栄養動脈はNBCAで閉塞, 右第8肋間からの栄養動脈起始部に留置し  
たバルンで血流コントロールを行い, 右第6肋間からの栄養動脈よりNBCAを注入, 完全閉塞  
を得た.

### 結論

複数のsegmental arteryからの流入動脈を有する脊髄硬膜動静脈瘻に対し, 異なるsegmental  
arteryからの流入動脈に留置したバルンによる血流コントロール下でのNBCA注入が有用であ  
った.

**緒言:**

脊髄硬膜動静脈瘻(spinal dural arteriovenous fistulas: s-dAVF)は脊髄の血管奇形の中で最も頻度が高く、60-80%を占めるとされ<sup>1)2)</sup>、年間発生率は100万人あたり5~10人とされる<sup>3)</sup>。直達手術による導出静脈離断の閉塞率は高い<sup>4)</sup>一方で、塞栓術による完全閉塞率は25%-75%とばらつきがある<sup>5)6)</sup>。s-dAVFに対する経動脈塞栓術(transarterial embolization: TAE)で完全閉塞を得るには、可能な限りwedgeさせたマイクロカテーテルからn-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA)をshuntからdrainerまで十分にpenetrateさせることが重要である。このためには、wedgeさせるtarget血管以外からの血流を遮断して、NBCAの進み具合と注入速度が一對一になるようにコントロールすることが重要である。今回我々は、3本のsegmental arteryが関与する胸髄s-dAVFに対する塞栓術に際して、複数のsegmental arteryのthree-dimensional digital subtraction angiography (3D-DSA)から作成したfusion画像を治療計画に用い、feederとシャントからdrainerまでの血管構築を明確にし得た。この情報を元に3本のfeederのうち1本をNBCAにて塞栓し、1本をバルンにて血流コントロールした状態でtargetとしたfeederよりNBCAをdrainerまでpenetrationさせることが出来た症例を経験した。異なるレベルのsegmental arteryに留置したバルンによる血流コントロール下のTAEに関する報告は渉猟し得た限りなく、その有用性を報告する。

**症例呈示:**

**〈患者〉**57歳 男性

**既往歴** 腰椎椎間板ヘルニア(30歳, 46歳時にヘルニア摘出術)

**現病歴** 201X年8月初めより両下肢の脱力を自覚し, 進行性の筋力低下により10月頃には歩行困難となり, 同時期から排尿障害も認めた. 近医から当院神経内科に紹介となり, 脊髄magnetic resonance imaging (MRI)にてs-dAVFが疑われ当科紹介となった.

**入院時神経学的所見** 意識清明, 脳神経及び両上肢に異常を認めず. 両下肢筋力はmanual muscle testing (MMT) 4/5, 両側大腿四頭筋はMMT 3/5, 歩行不能で車椅子移動であった. 両側臍レベル以下で深部知覚低下(上肢との比較で4/10)を認め, Romberg徴候陽性であった. 膝蓋腱反射及びアキレス腱反射は両側で低下していた. 反射性尿失禁を認め, 自己排便困難であり, 間歇的浣腸による排便を行っていた.

**血液検査所見** 特記すべき異常なし.

**神経放射線学的所見** 胸腰椎MRI T2強調画像矢状断(Fig. 1A)にて第7胸椎レベルより尾側の脊髄内に高信号(Fig. 1A 白矢印), 背側にはflow voidを示す低信号(Fig. 1A 黒抜き矢印)を認め, 冠状断(Fig. 1B)では脊髄背側に拡張蛇行したdrainer(Fig. 1B 黒抜き矢頭)を認めた. Computed tomography angiography (CTA)のmaximum intensity projection (MIP)冠状断(Fig. 1C)では, 第7, 8胸椎レベル右側から拡張蛇行した脊髄静脈(Fig. 1C 白矢頭)を認めた. 右第6肋間及び右第8肋間動脈からのfeederの関与が考えられ, 右第7肋間動脈からの

feederの関与も予測された。以上の検査結果から、胸髄s-dAVF (Aminoff-Logue scale G4, M2) と診断し、診断血管撮影と同一セッションでTAEを行う方針とした。

**脊髄血管撮影** 全身麻酔導入後に両側大腿動脈に7French (Fr) シースを留置し、ヘパリン 3000単位を投与して全身のヘパリン化を行い、以後1000単位/時を持続静注した。4Fr Cobra (Medikit, Tokyo, Japan) を用いて診断血管撮影を行った。右第6肋間動脈 (Fig. 2A, B), 右第7肋間動脈 (Fig. 2C), 右第8肋間動脈 (Fig. 2D) ではTransit 2 (Cordis, Johnson & Johnson, Fremont, CA, USA) を挿入し選択的撮影及び3D-DSAを行った。右第6肋間動脈からの3D-DSAでは、吻合を介して右第7肋間動脈も描出されたため、これと右第8肋間動脈の3D-DSAをワークステーション上のソフト (Syngo Inspace 3D/3D fusion; Siemens AG, Forchheim, Germany) を使用してfusion画像を作成し、一つのvolumeとして表示させた (Fig. 2E)。右第6-8肋間動脈から分岐するradicular artery (Fig. 2E 白矢印, 白抜き矢印, 白抜き矢頭) をfeederとし、右第7胸髄神経根付近にシャントポイントを有し (Fig. 2E 白矢頭), perimedullary veinへ流入するs-dAVFを認めた。右第6-8肋間動脈よりのspinal arteryの分枝は認めなかった。また、Adamkiewicz arteryは左第10肋間動脈撮影にて確認され、病変との関与は認めなかった。

**血管内治療** 3D-fusion DSA画像による検討にて、3本の異なるsegmental arteryからのfeederが関与する病変であり、NBCA注入に際してはfeeder-shunt-drainerを単純化させる必要があると考えた。NBCAはwedgeが可能であろうと考えられ、シャントまで明瞭に観察出来る右第6肋

間動脈より分岐するradicular arteryより注入する予定とした(Fig. 2B). それに先立ち右第7・8肋間動脈からのradicular arteryのうち1本をNBCAにて近位閉塞し, もう1本をバルンにて閉塞し血流コントロールをする方針とした. 右第7肋間動脈からのdorsospinal branchの分岐は急峻な立ち上がりであったことから, バルンの誘導は困難と考え, 右第7肋間動脈からのradicular arteryはNBCAにて近位閉塞した. 右第8肋間動脈からのdorsospinal branchにバルンを誘導し, radicular artery起始部を閉塞することで血流コントロールを得た. 右第6肋間動脈に7Fr Axess JR4.0(朝日インテック, Aichi, Japan)及び4Fr Cerulean(Medikit, Tokyo, Japan)を同軸としてventral及びdorsospinal branch分岐の近位に留置し, radicular arteryにMarathon (Covidien, Irvine, CA, USA)を留置した(Fig. 2B 矢印). 同様のシステムを右第7肋間動脈にも留置し, radicular arteryに留置したMarathon (Covidien, Irvine, CA, USA)(Fig. 3A 矢印)から50%NBCAにてfeeder閉塞を行った(Fig. 3B). 右第7肋間動脈のシステムを右第8肋間動脈起始部に再留置して, ここからのradicular arteryがシャントに収束するポイントを確認(Fig. 3C 矢印), SHOURYU 4mm x 10mm (Kaneka Medix, Osaka, Japan)をradicular artery起始部に留置した(Fig. 3D 矢印). バルンをinflateした状態で右第6肋間動脈より分岐するradicular arteryに留置したマイクロカテーテルよりの造影を行うとdrainerのlaminar flowが消失していた. ここから14%NBCAの注入を行い, シャント及びdrainerへの流入を認め, 右第8肋間動脈よりのradicular arteryにもrefluxが得られた(Fig. 4A, B, C). TAE後の右第6-8肋間動脈撮影で病変の消失を確認し, 手技を終了した.

**術後経過** 術後2日のCTAではシャント及びdrainerの近位部にNBCA castを認め、拡張蛇行した静脈の消失を認めた(Fig. 5A). 術後経過は順調であり、両下肢の筋力は両側ともにMMT5-/5まで改善、独歩可能となった。深部知覚低下も改善を認め、Romberg徴候は陰性となった。術後22日にmodified Rankin Scale (mRS) 2の状態でのリハビリテーション病院に転院し、3ヶ月のリハビリテーションにてわずかな両下肢深部知覚低下を残して自宅退院、復職可能となった。術後6ヶ月後に行ったMRIでは髄内の信号変化は改善しており、flow voidは消失していた(Fig. 5B, C).

#### **考察:**

本稿では、3本のsegmental arteryからfeederを受けるs-dAVFのTAEに際して、最終的にNBCAを注入するtarget血管を決め、これ以外のfeederからのflowをNBCAによるfeeder occlusionと、バルンによる血流コントロールでコントロールすることで、feederからshunt及びdrainerまでの血管構造を単純化する工夫を行った。これにより、NBCAの注入中は良好なコントロールが得られ、drainerまでのpenetrationが得られたと同時に、バルンでコントロールしたfeederへのrefluxも得られたことで確実に塞栓術が行えたと考えた。

頭頸部領域の血管内治療と同様に、s-dAVFの治療の際にも3D-DSA画像を用いることで、血管解剖を明瞭に把握することが出来、working angle等を決定する際に有用である<sup>7)</sup>。近年では二つの3D-DSAをワークステーション上でfusionさせて提示することも可能になってきた

<sup>8)</sup>。今回我々は、多椎間から栄養されるs-dAVFの血管解剖を把握するために、右第6肋間



動脈撮影(右第7肋間動脈は吻合により描出), 右第8肋間動脈撮影の3D-DSA画像をfusionさせた. これにより複数の segmental artery からの feeder, shunt 及び drainer の関係を描出することができ, 血管構築の詳細な評価は治療計画に有用であった. s-dAVF に対するNBCAを用いた塞栓術での最近のレビュー<sup>9)</sup>では, その閉塞率は70-90%に達すると報告されており, 外科的導出静脈離断の成績と比較して遜色ない結果となってきた. また, 近年は頭蓋内 dAVF で頻用される Onyx による TAE の有用性も報告されるようになってきたが, Onyx は視認性の問題や, 長期的な閉塞維持に関して NBCA には劣るのではないかとされ<sup>10)</sup>, 現段階では NBCA による塞栓術がスタンダードであると思われる. NBCA を用いた TAE の際には, 可能な限りマイクロカテーテルを wedge させて, ここから NBCA をシャントを越えて drainer まで penetrate させる必要がある. このためには, 複数存在する feeder から shunt point 及び drainer までを single feeder, single drainer に近い血管構築にする事が理想であり, そのような単純化された血管構築であると, 注入する速度と NBCA の動きが良好にコントロール出来, drainer まで達することが出来る. またマイクロカテーテルを wedge させることは最も重要であるが, 必ずしもそのような状況が得られるわけでないため, wedge が出来ない場合に parallel に送ったマイクロカテーテルからコイルで意図的に wedge を作り出して NBCA を注入するような工夫<sup>5)</sup>や, NBCA の注入時にバルーンカテーテルを feeder の起始部に留置することで wedge を作り出すことが報告されている<sup>11)</sup>. しかしながら, 注入する NBCA を確実に drainer まで到達させるには, shunt に流入してくる target 血管以外からの血流をコントロールすることも重要であり, この処理を怠ると

NBCA が drainer に到達する前に意図しない早期硬化を生じることがある。また、流入する血流により NBCA cast が fragmentation を起こして脊髄静脈内に飛散することにより、病変と異なった部位での静脈還流障害を引き起こしたり、十分な penetration が得られずに不完全な塞栓となることもある。本症例の TAE の際には、術前 CTA で最も明瞭であり、確実に wedge が得られた右第 6 肋間動脈より分岐する radicular artery を NBCA 注入の target 血管とし、右第 7 肋間動脈よりの radicular artery は NBCA にて、右第 8 肋間動脈からの血流は radicular artery 起始部をバルンにて閉塞することによって血流をコントロールした。このことによりシャントは単純化され、NBCA の注入は非常にコントロールラブルとなり、NBCA の fragmentation を引き起こすことなく drainer まで注入することができ、バルンで閉塞していた feeder にも reflux を認めた。我々が狩猟し得た限りでは、s-dAVF において他の segmental artery からの血流をバルンでコントロールした上での TAE の報告は認められず、本法を行う利点を以下に述べる。shunt に流入してくる血流をコントロールするという点では、feeder occlusion する手技と同じであるが、バルンによる血流コントロールであれば、万が一 target 血管(本例では右第 6 肋間動脈からの radicular artery)からの NBCA 注入が不完全閉塞となった場合にバルンを解除し、同血管(本例では右第 8 肋間動脈の radicular artery)より TAE を追加することが出来る可能性がある。NBCA による feeder occlusion を行ってしまうと、その血管から追加の塞栓は難しくなるが、バルンを用いることで血流コントロールに関しては同様の効果が得られながら追加治療の可能性を残すことができる。一方で、バルンは細い脊髄血管、特に radicular artery 等には挿入出来るこ

とは少なく、起始部をバルンで閉塞させるという使い方になるため、確実に起始部を閉塞できる留置位置を検討して注意する必要がある。また、閉塞する部位によっては retrocorporeal anastomosis 等の他の segmental artery からの側副血行路により、意図した閉塞効果が得られない事も考えられる。本症例ではこの閉塞効果を確認するため、右第 8 動脈より分岐する dorsospinal branch に留置したバルンを inflate して radicular artery の起始部を閉塞した状態で、右第 6 肋間動脈より分岐する radicular artery に留置したマイクロカテーテルからの造影を行った。この際に drainer の laminar flow が消失していたことより、意図した flow control が得られたと判断した。その他にも、マイクロカテーテルと異なりプロファイルが太くなるため、中間カテーテルの使用が難しくなり、意図した場所まで誘導することが困難な場合も想定される。大腿からのアプローチでは、NBCA を注入する血管以外の 1 本の血管はこのような方法で血流コントロールすることが出来るが、それ以上の数の栄養動脈は本症例で行ったように NBCA で feeder occlusion する必要がある。 **結語:**

3本のsegmental arteryが関与するs-dAVFに対し、NBCAを注入する以外の2本のradicular arteryよりの血流をコントロールした上でNBCAによるTAEを行い、良好なpenetrationによる完全閉塞を得た。これには異なるsegmental arteryに留置したバルンでの血流コントロールが有用であった。

**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. Aminoff MJ, Logue V. The prognosis of patients with spinal vascular malformations. *Brain* 1974; 97: 211-218.
2. Kim LJ, Spetzler RF. Classification and surgical management of spinal arteriovenous lesions: Arteriovenous fistulae and arteriovenous malformations. *Neurosurgery* 2006; 59: 195-201.
3. Koch C. Spinal dural arteriovenous fistula. *Curr Opin Neurol* 2006, 19: 69-75.
4. Steinmetz MP, Chow MM, Krishnaney AA, et al. Outcome after the treatment of spinal dural arteriovenous fistulae: A contemporary single-institution series and meta-analysis. *Neurosurgery* 2004; 55: 77-87.
5. Suh DC, Cho SH, Park JE, et al. Induced-Wedge Technique to Improve Liquid Embolic Agent Penetration into Spinal Dural Arteriovenous Fistula. *World Neurosurg* 2016; 96: 309-315.
6. Su IC, TerBrugge KG, Willinsky RA, et al. Factors determining the success of endovascular treatments among patients with spinal dural arteriovenous fistulas. *Neuroradiology* 2013; 55: 1389-1395.

7. Prestigiacomo CJ, Niimi Y, Setton A, et al. Three-dimensional rotational spinal angiography in the evaluation and treatment of vascular malformations. *AJNR Am J Neuroradiol* 2003; 24: 1429-1435.
8. Fukuda K, Higashi T, Okawa M, et al. Fusion Technique Using Three-Dimensional Digital Subtraction Angiography in the Evaluation of Complex Cerebral and Spinal Vascular Malformations. *World Neurosurg* 2016; 85: 353-358.
9. Sivakumar W, Zada G, Yashar P, et al. Endovascular management of spinal dural arteriovenous fistulas. A review. *Neurosurg Focus* 2009; 26: 337-343.
10. Blackburn SL, Kadkhodayan Y, Ray WZ, et al. Onyx is associated with poor venous penetration in the treatment of spinal dural arteriovenous fistulas. *J Neurointerv Surg* 2014; 6 : 536-540.
11. Cohen JE, Moscovici S, Itshayek E. The advantages of balloon assistance in endovascular embolization of spinal dural arteriovenous fistulas. *J Clin Neurosci* 2013; 20: 141-143.

**Figure legends**

## Figure 1

Thoracic mid sagittal (A) and coronal (B) images of T2-weighted MR images shows hyperintensity area (A, white arrows) which starts at the level of the Th7 vertebral body and continue to the conus medullaris. Note serpiginous flow voids (A, black blank arrows) and the tortuous dilated perimedullary vein (B, black blank arrow heads) on the dorsal surface of the spinal cord. A coronal reconstruction of contrast-enhanced CT maximum intensity projection image (C) shows dilated radicular vein (C, white arrow head) which starts at the level of the Th7 root.

## Figure 2

Right Th6 (A), Th7 (C), and Th8 (D) intercostal artery angiogram show a spinal dural arteriovenous fistula. Note the radicular arteries from right Th6 (B, micro injection from radicular artery), Th7 (C, arrow), and Th8 (D, arrow). A dual fusion vessel image constructed from 3D-DSA of Th6 (red, Th7 intercostal artery is also seen through intercostal longitudinal anastomosis) and Th8 (gray) intercostal arteries (E) shows shunting point (arrow) and feeders from three Th6-8 segmental arteries. White arrows, blank arrows, and blank arrow heads show

right dorsospinal branches of Th6, Th7, and Th8 right intercostal arteries, respectively.

#### Figure 3

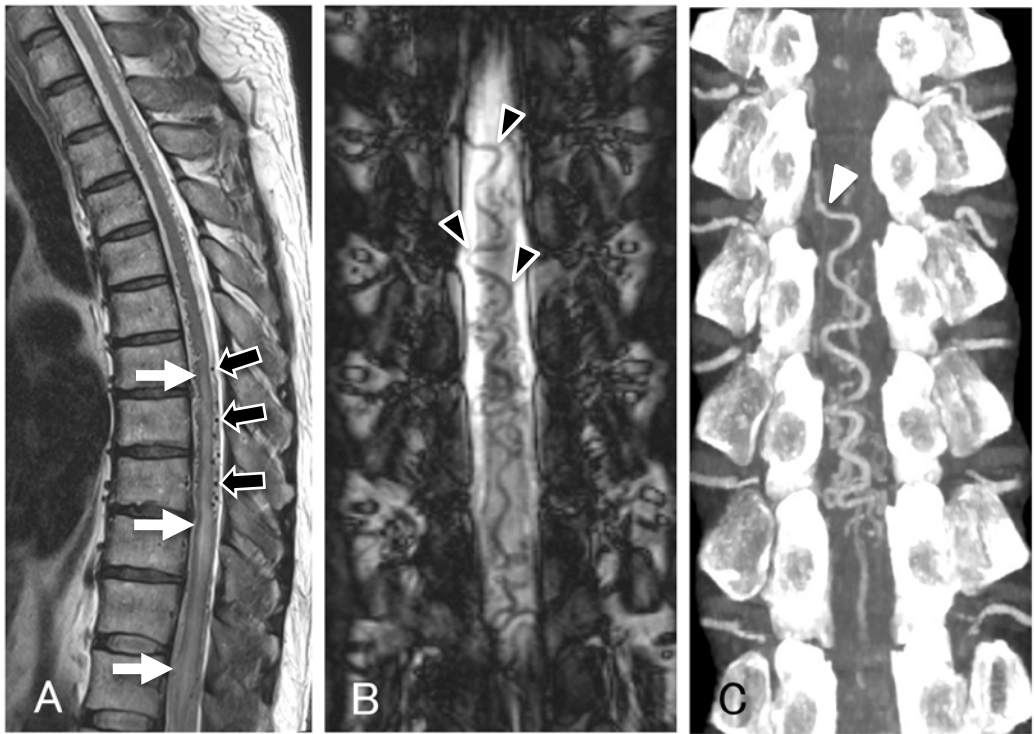
Superselective microcatheter injection (arrow) of right Th7 radicular artery (A) shows spinal dural arteriovenous fistula. Injection of 50% NBCA from Th7 radicular artery (B) results in feeder occlusion. Right Th8 intercostal injection (C) obtained after Th7 radicular artery feeder occlusion clearly shows fistulas point (arrow) of the fistula. A non-subtracted image (D) shows inflated balloon (arrow) placed in the dorsospinal branch of right Th8 intercostal artery.

#### Figure 4

DSA (A) and non-subtracted (B) images just after withdrawal microcatheter during balloon assisted injection of low concentrate NBCA from right Th6 radicular artery show that glue penetrate the shunting point and radicular vein with the reflux to the Th8 radicular artery. A non-subtracted image (C) shows the final cast of radiopaque NBCA.

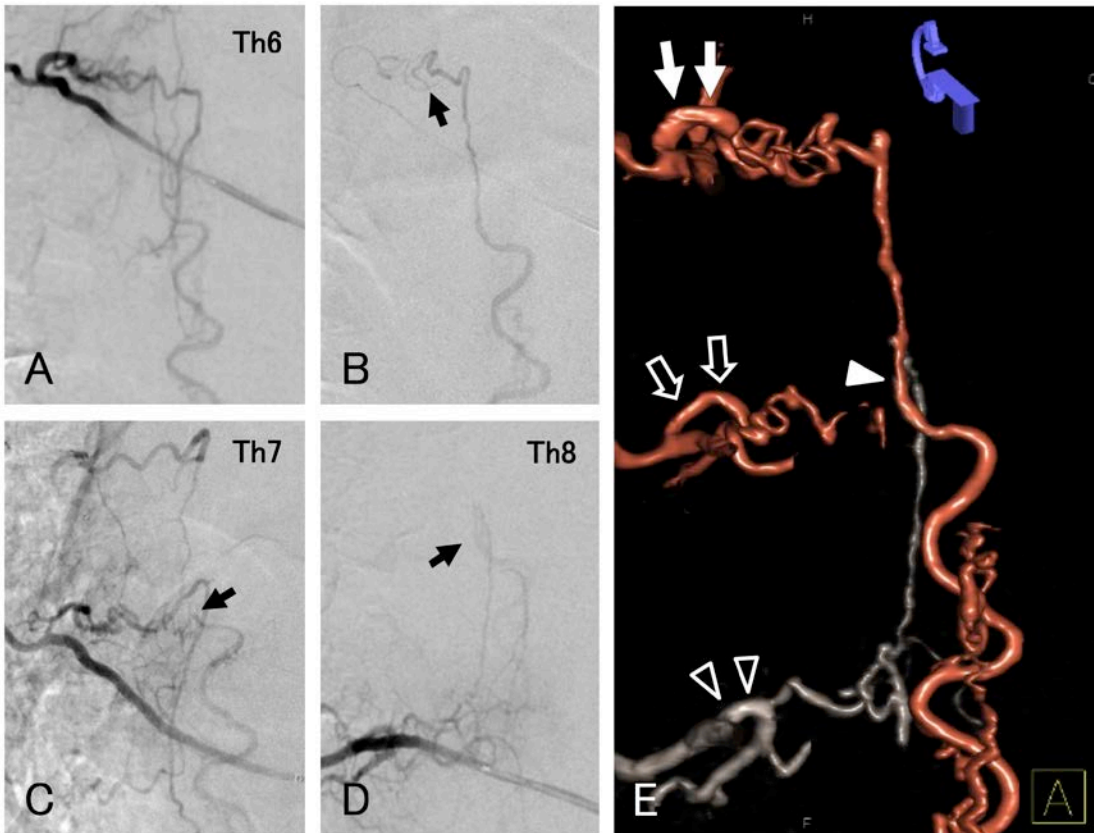
#### Figure 5

A coronal reconstructed CT image (A) obtained next day of embolization shows the cast of NBCA in the radicular vein (arrow). Sagittal images of T2-weighted thoracic MRI (B, C) obtained 6 months after embolization show the disappearance of flow voids and the improvement of abnormal signal change in the spinal cord.

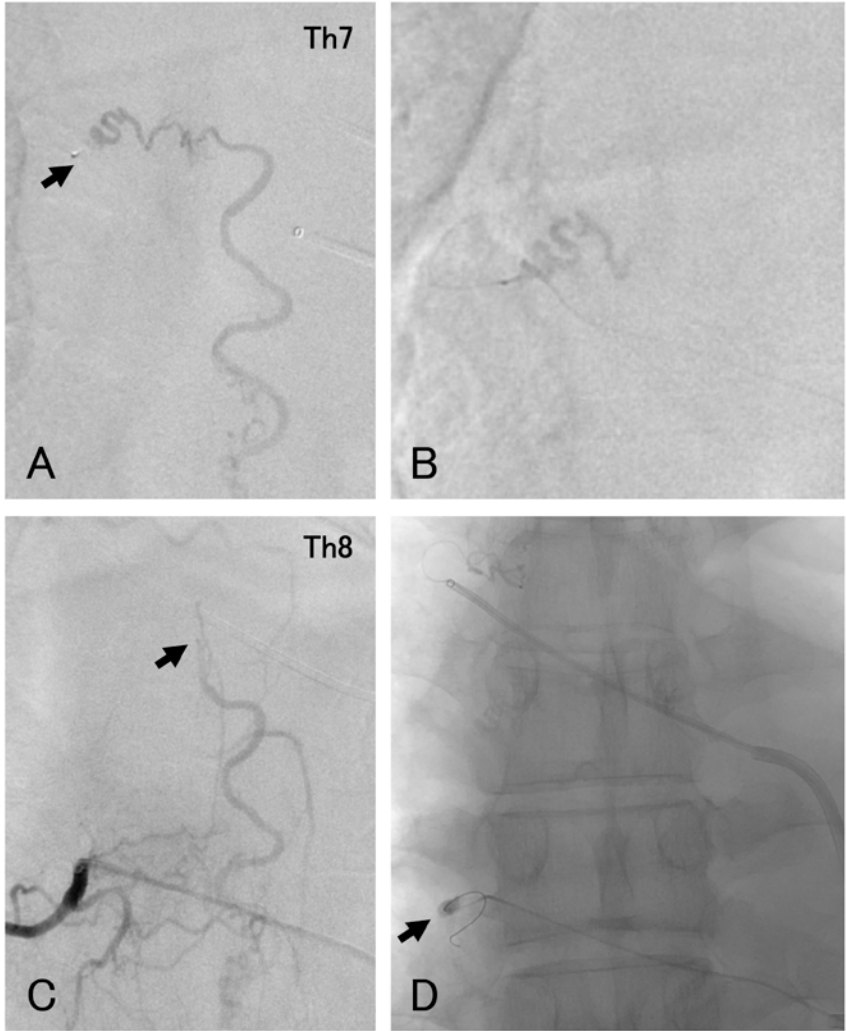


**Fig. 1**

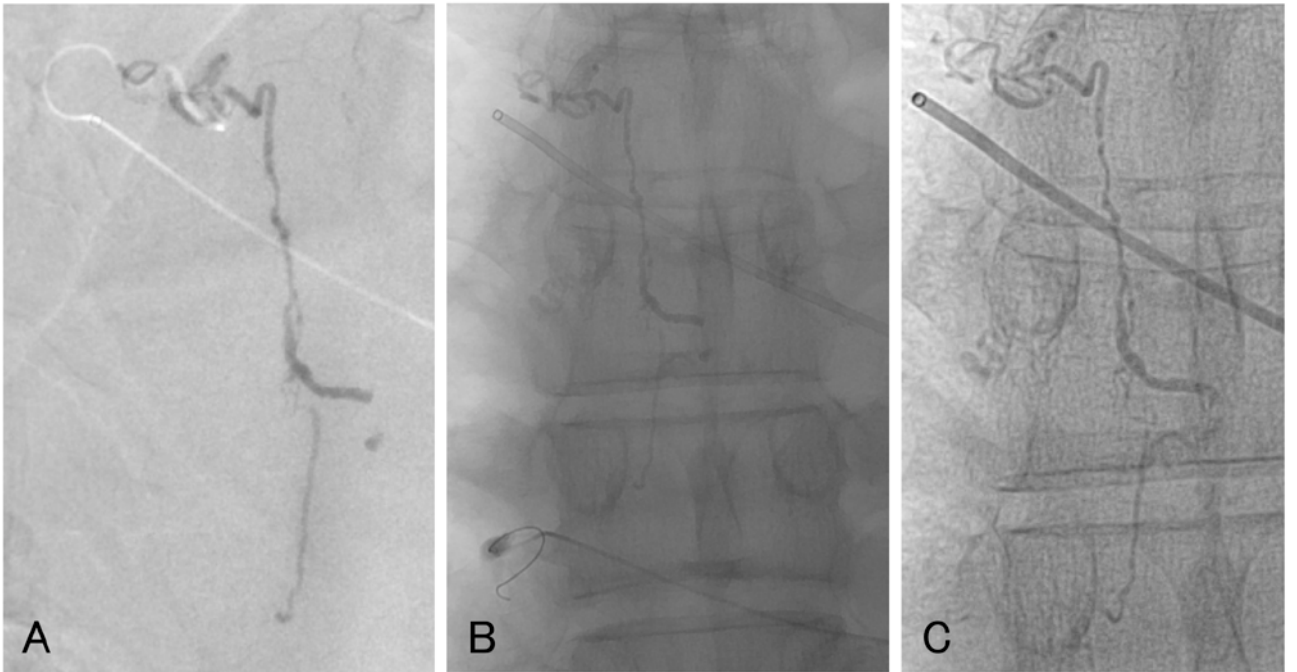




**Fig. 2**



**Fig. 3**



**Fig. 4**



**Fig. 5**