

1)論文種別 症例報告

2)論文タイトル

血管内治療を先行し開頭術を追加して治療した、頭蓋頸椎移行部硬膜動  
静脈瘻の一例

3)全員の著者名

金子純也<sup>1</sup>、柴田あみ<sup>1</sup>、北橋章子<sup>1</sup>、工藤小織<sup>1</sup>、畝本恭子<sup>1</sup>、山口英宣<sup>2</sup>、  
山崎道生<sup>3</sup>、玉置智規<sup>3</sup>、松本学<sup>4</sup>、横田裕行<sup>5</sup>、兵頭明夫<sup>6</sup>

4) 1 日本医科大学多摩永山病院 救命救急センター

2 同放射線科

3 同脳神経外科

4 山梨県立中央病院 救命救急センター

5 日本医科大学付属病院 高度救命救急センター

6 獨協医科大学越谷病院 脳神経外科

5) 連絡著者の氏名・連絡先

氏名 金子純也

所属先／部署 日本医科大学多摩永山病院 救命救急センター

住所 〒206-8512 東京都多摩市永山 1-7-1

電話番号 042-371-2111(代表) 内線 3128

メールアドレス [kanekojunya0125@yahoo.co.jp](mailto:kanekojunya0125@yahoo.co.jp)

## 6) キーワード

頭蓋頸椎移行部、硬膜動静脈瘻、クモ膜下出血、血管内治療、開頭手術

## 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 Neuroendvascular 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いたします。

## タイトル

血管内治療を先行し開頭術を追加して治療した、頭蓋頸椎移行部硬膜動静脈瘻の一例

## 要旨

「目的」頭蓋頸椎移行部硬膜動静脈瘻（craniocervical junction dural arteriovenous fistula CCJ dAVF）はクモ膜下出血(SAH)の原因となる。SAH発症のCCJ dAVFに血管内治療を先行し、開頭術を追加して根治した症例を提示する。

「症例」全身状態が不良であり経動脈的塞栓を試みるもfeeder occlusionとなった。しかしこれによりシャントポイントがより明瞭となり開頭でのdrainer遮断にて根治した。

「結語」CCJ dAVFに対し、血管内治療に開頭術を追加して治療した。血管内治療単独で根治できなかったが、シャント量が減少し血管解剖の把握がより明確になった。

## 本文

### 「諸言」

CCJ dAVFは、稀な病態ながらSAHの原因として重要である。CT angiographyで出血源が診断できないことも多く、詳細な血管撮影が必須である。治療法が異なることから、同部のシャント疾患である傍脊髄動静脈瘻（perimedullary AVF）や動静脈奇形（arteriovenous malformation AVM）との鑑別を要する。今回、血管内治療を先行し、開

頭術を追加して治療した CCJ dAVF の一例を経験したので報告する。血管解剖の理解が治療法の選択において最も重要となる。

「症例提示」

73歳 男性

自宅で突然の意識障害にて発症し前医へ搬送された。前医搬送時 GCS13(E3V4M6)であった。頭部CTではFisher group3のSAH( Figure 1 ) であった。引き続き血管撮影が行われCCJのシャント疾患の診断となり治療法を検討していたが、肺炎、急性腎不全を併発し集中治療目的に day14に当院へ転送となった。当院では合併症に対する集中治療を行い、軽快したday23で血管撮影を行った。硬膜貫入直後の左椎骨動脈(VA) から分岐するradicular a.のmeningeal brunchをfeederとし、延髄腹側でシャントし、異常に屈曲蛇行したpontomesencephalic veinを經由して延髄橋前面を上行するdrainerを持つCCJ dAVFと診断した(Figure 2)。3D angiographyの再構成図からシャント直前に数珠状の膨隆が連続していた。撮影上はsingle feederであり前脊髄動脈の関与も否定的であった。血管解剖の詳細をFigure 3に示す。術前は長期臥床によるADL低下は認めるものの意識は清明となった。開頭術も考慮したが、手術に耐えられる目処が立たなかった。また本症例の解剖から血管内治療での根治が目指せると判断し、day30に経動脈的塞栓を企図した。全身麻酔下に 6Fr.Roadmasterガイディングカテーテル MPDA 90cm(Goodman, Nagoya, Aichi, Japan)を左VA V2 position高位に留置した。先端を軽度屈曲させたMarathonマイクロカテーテル ( Covidien, Minneapolis, MN, USA ) をCHIKAIマイクロワイヤー 0.010(Asahi-Intecc, Nagoya, Aichi,

Japan)を用いてmain feederに挿入した。マイクロカテーテルからの造影にて回転撮影を行い、さらにマイクロカテーテルを先進させた。pig tail様のターンが2回続いた先がシャントポイントと思われたが、マイクロカテーテルを2回転目のターンから先に進められなかった。塞栓物質がシャントポイントまで到達することを期待して20%NBCAを注入したが、glueは遠位まで到達せずmain feeder occlusionに終わった。このmain feederの起始部からもfeederがある可能性を考慮し、SL10マイクロカテーテル(Stryker, Kalamazoo, MI, USA)をCHIKAIマイクロワイヤー0.014(Asahi-Intecc, Nagoya, Aichi, Japan)を用いて再挿入した。起始部をTarget coil 360 Ultra (Stryker, Kalamazoo, MI, USA)で完全に閉塞させてもシャントが残存した。本治療後の新たな神経症状の出現は認められなかった。塞栓後の造影では、細い硬膜枝のfeederが1点に集まり太いdrainerに移行するシャントポイントをより明瞭に把握できた ( Figure 4)。シャント量の軽減は得られたが、シャントが完全に閉塞しなかったので、根治には開頭によるdrainer遮断が必要と判断した。しかし新たな全身合併症(胃消化管間葉系腫瘍からの腹腔内出血)の治療が優先され、ようやく全身状態が改善したday148に左外側後頭下開頭による根治術を行った。舌下神経近傍の硬膜にdrainerを同定し、それに連なる延髄前面を上行する蛇行血管を確認した。できるだけ硬膜に近い部位でdrainerをクリップで遮断し ( Figure 5 ) ICG撮影にて蛇行血管の血流消失を確認した。術後の血管撮影でもシャントの消失を確認した ( Figure 6)。その後day209にリハビリ病院へ転院となった。発症から1年が経過し嚥下障害が残るものの、意識清明で基本的なADLは自立している。

## 「考察」

CCJ dAVF は非常に稀な疾患である。日本の全国調査によると dAVF は年間発生率 10 万人あたり 0.29 人、その中で CCJ は全 dAVF の 2.4% であり、計算上は 1000 万人に年間 0.7 人発生する<sup>1</sup>。Zhao らの 56 例の CCJ dAVF の review<sup>2</sup> では dAVF が女性に多いのに対し CCJ dAVF は男性優位 (男女比 3:1) であり、胸髄以下の dAVF が myelopathy で発症するのが多いのに比べて出血発症 (SAH) が多い (37.5%)。また SAH は動脈瘤破裂による SAH に比べて軽症 (Hunt&Hess grade と で 83.3%)<sup>3</sup> であ<sup>3</sup>。症状は流出路の方向が関与しており、上行するものは出血で発症し、下降するものは myelopathy で発症することが多い<sup>2-4</sup>。症例の希少さから自然経過については不明であり、再出血率、再出血の時期についてもまとまった報告がない。行性の myelopathy は治療適応である。出血発症の場合、一般には動脈瘤破裂時のような緊急性はないと考えられているが、初発から 4 ヶ月後の再出血症例も報告されており<sup>5</sup>、根治を目指すべきと考える。診断には CTA や MRA が第一に用いられるが、血管解剖の把握には血管撮影が必須である。3D angiography でも詳細な構造の把握が困難な場合もあり、選択撮影や 3D angiography MIP image が有用である。特に鑑別を要する CCJ perimedullary AVF は脊髄動脈の関与が必須であり、治療も drainer 遮断では根治できず、シャントポイント自体の閉塞を要するため注意が必要である。perimedullary AVF と dAVF の合併例も報告されている<sup>6,7</sup>。画像上のシャントポイントの診断は血管径の急激な変化をもって行う<sup>6,8</sup> が、困難な場合がある。今回は塞栓後の椎骨動脈撮影と 3D angiography MIP image を比較することでシャント

ポイントがより明確となった。シャントポイントの詳細な把握のためには、main feeder を実際に閉塞するかわりに micro balloon で遮断して造影する方法も考えられる。治療については開頭手術が選択されることが多く、本疾患の review<sup>2,3</sup>でも開頭手術が 100%近い根治性があるのに対して、血管内治療では 70%前後の根治率にとどまっている。feeder が細く、かつ蛇行屈曲しているため、micro catheter をシャントポイント近傍まで進めて塞栓物質を流すのが困難であり、本症例でも feeder occlusion に終わった。また脳幹を栄養する血管との吻合があり塞栓物質の迷入で予期せぬ合併症を来すこともある。他部位の dAVF と異なり、当初から血管内治療と開頭術を組み合わせ治療した報告はない。血管内治療で根治を目指したもののシャントが残存した場合に開頭術が追加されており<sup>2,3</sup>、本症例と同様である。今回は全身状態から開頭術を行える状態でなかったこと、出血発症でありシャント血流を減じる何らかの治療を早期に行いたかったこと、また本症例の血管解剖から脊髄血管への塞栓物質の迷入の可能性は低いと判断して血管内治療を行った。全身状態不良例に対して椎骨動脈を母血管閉塞して根治させた報告もあるが<sup>9</sup>、dAVF では塞栓前には明らかでない潜在的な feeder が顕在化する可能性があり、根知的治療とならない可能性がある。近年では Onyx による根治例が報告されており<sup>10,11</sup>、今後血管内治療の根治性が高まる可能性がある。

#### 「結語」

SAH で発症した CCJ dAVF に対し、血管内治療に開頭術を追加して治療した。血管内治療単独で根治できなかったが、合併症を来さずシャント

量を減少させた。これにより血管解剖の把握がより明確になり開頭術で根治し得た。

「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。

「文献」

1, Kuwayama N, Kubo M, Endo S, et al. Present Status in the Treatment of Dural Arteriovenous Fistulas in Japan. *Jpn J Neurosurg* 2011;20:12-19

2, J Zhao, F Xu, J Ren, et al. Dural arteriovenous fistulas at the craniocervical junction: a systematic review. *J NeuroIntervent Surg* 2016;8:648-653

3, J Y. Wang, J Molenda, A Bydon, et al. Natural history and treatment of craniocervical junction dural arteriovenous fistula. *J Clin Neurosci* 2015;22:1701-1707

4, Kinouchi H, Mizoi K, Takahashi A, et al. Dural arteriovenous shunt at the craniocervical junction. *J Neurosurg* 1998;89(5):755-61

5, Inamasu J, Tanaka R, Nakahara I, et al. Dural arteriovenous fistula of the craniocervical junction manifesting as cerebellar haemorrhage. *Neuroradiol J*. 2016;29(5):356-60

6, Sato K, Endo T, Niizuma K, et al. Concurrent dural and peromedullary arteriovenous fistulas at the craniocervical junction: case series with special reference to angioarchitecture. *J*

Neurosurg 2013;118:451-9

7, Kim DJ, Willinsy R, Geibprasert S, et al. Angiographic characteristics and treatment of cervical spinal dural arteriovenous fistula. AJNR 2010;31:1512-5

8, Miyoshi Y. Re:perimedullary arteriovenous fistula at the craniocervical junction-case report. Neuro Med Chir(Tokyo)2011;51(7)547-8

9, Suda S, Katsura K, Okubo S, et al. A case of dural arteriovenous fistula at the craniocervical junction presenting with occipital/neck pain associated with sleep. Intern Med 2012;51(8):925-8

10, E Salamon, A Patsalides, Y P Gobin, et al. Dural arteriovenous fistula at the craniocervical junction mimicking acute brainstem and spinal cord infarction. JAMA Neurol 2013;70(5):796-7

11, Wu Q, Wang HD, Shin YS, et al. Brainstem congestion due to dural arteriovenous fistula at the craniocervical junction. J Korean Neurosurg Soc. 2014; 55(3):152-5

#### 図表の説明

Figure1 発症時 CT 延髄前面に厚い SAH を認める

Figure2 左椎骨動脈撮影 (a) 正面像 (b) 側面像 延髄前面から上方へ向かう異常血管網 (矢印) を認める

Figure3 (a)3D angiography 再構成像 (b)模式図 (c)超選択的撮影  
feeder が、 feeder aneurysm を経て、 \*シャントポイントに達し、  
drainer に移行する。×は Marathon micro catheter の先進点 VA  
vertebral artery

Figure4 (a)塞栓後 左椎骨動脈撮影斜位 (b)3D angiography の MIP  
image main feeder が塞栓されたため、新たな feeder の硬膜枝(矢頭)  
が顕在化しシャントポイント(矢印)が明瞭となった。

Figure5 (a)3D angiography再構成像 実際の手術と同様に術野を横切  
る塞栓した硬膜内 main feeder を切断した図 (b)模式図 硬膜貫通部  
で塞栓された feeder のループ、 main feeder 塞栓後に顕在化した feeder、  
\*シャントポイント、 クリップ遮断部位、点矢印 術中切断した硬膜  
内 main feeder の一部 (c) (d)術中画像 \*シャントポイントに近い  
drainer を clip で遮断 塞栓した feeder のループ VA vertebral  
artery

Figure6 開頭術後 左椎骨動脈撮影(a)正面像 (b)側面像 異常血管の  
消失を確認

Fig.1

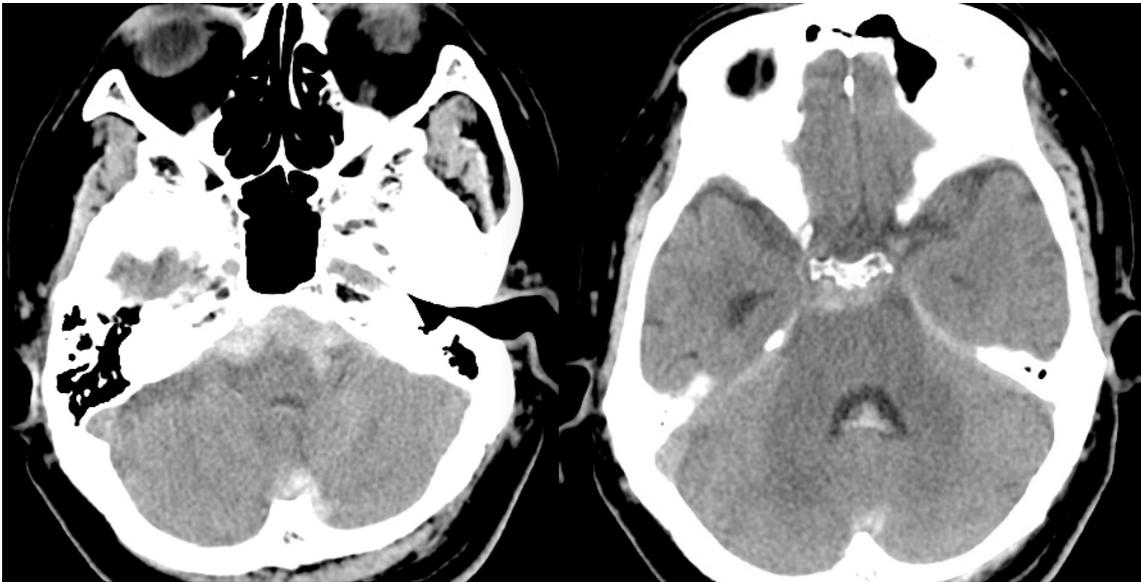


Fig.2

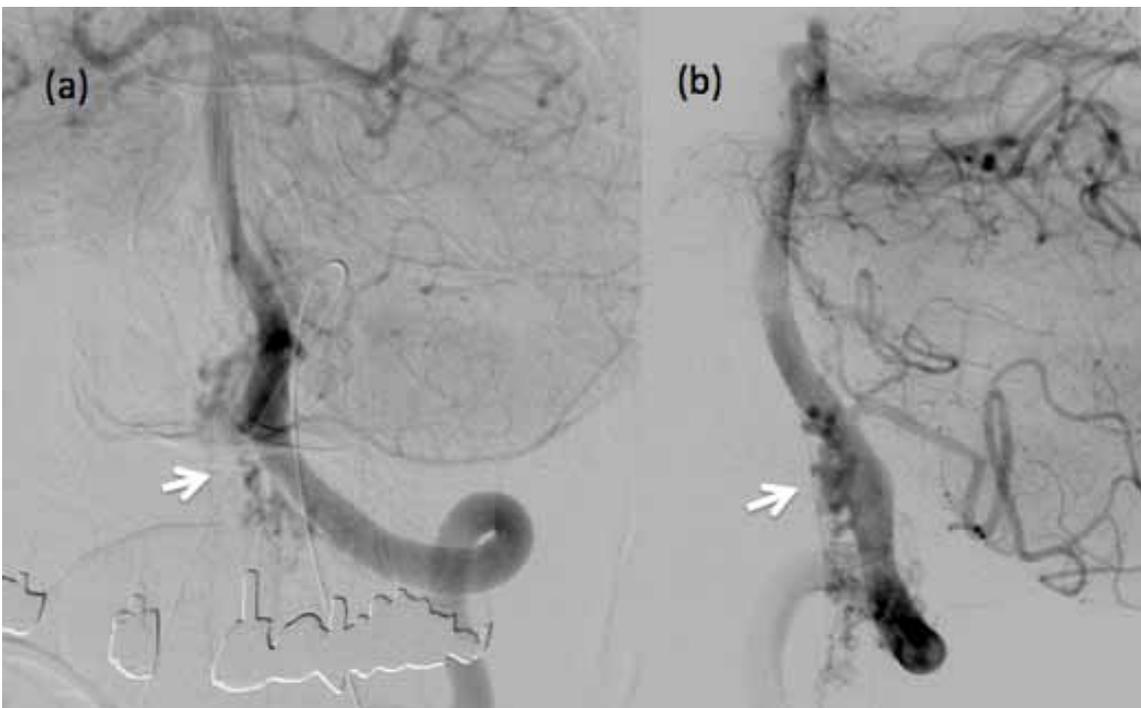


Fig.3

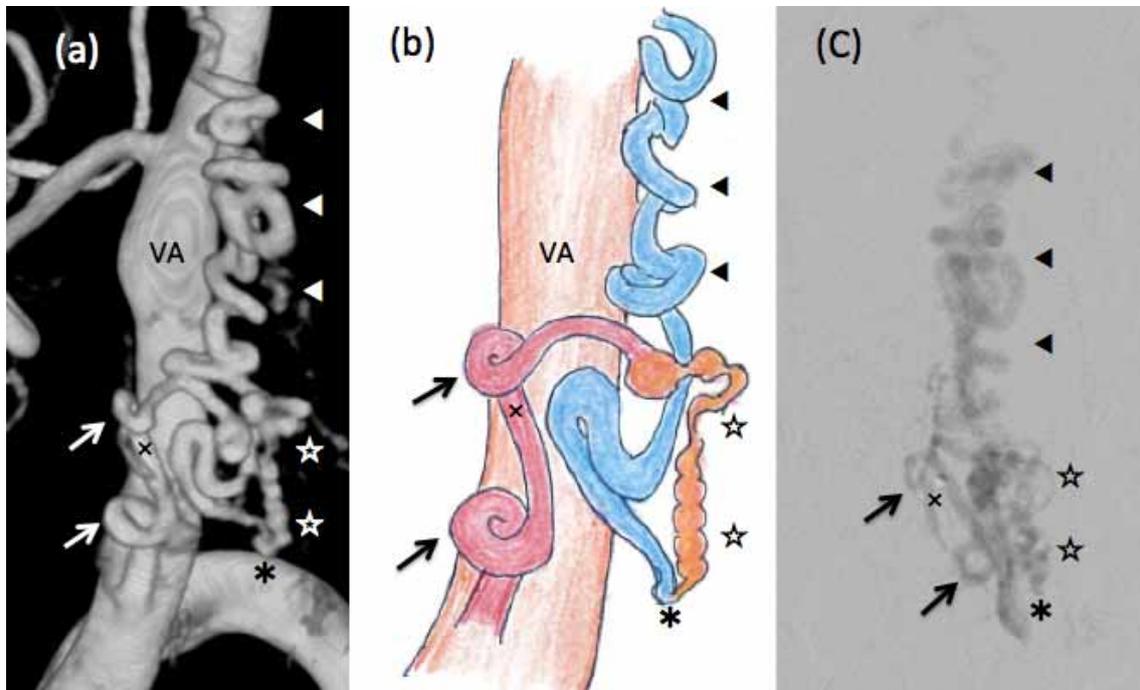


Fig.4

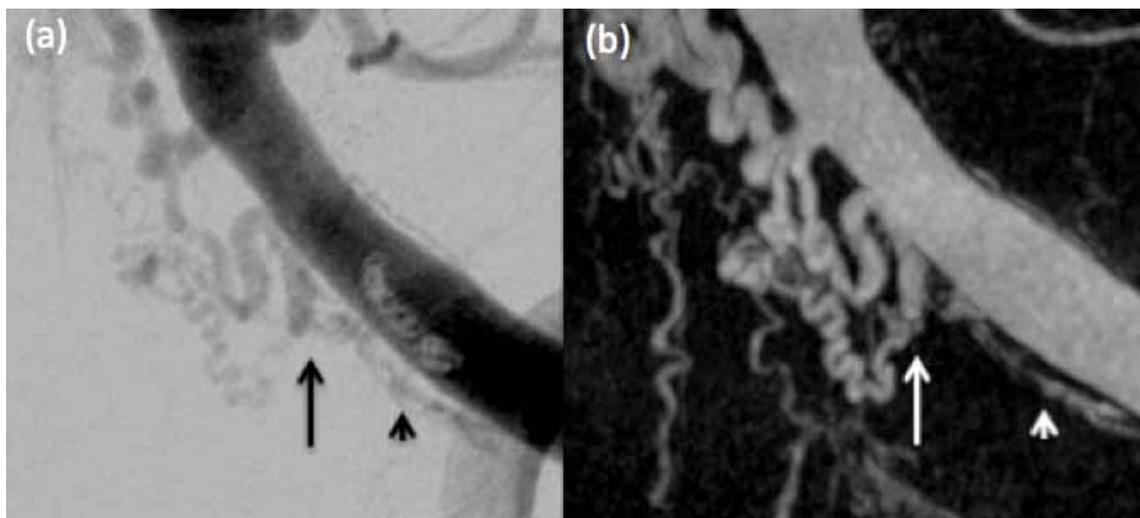


Fig.5

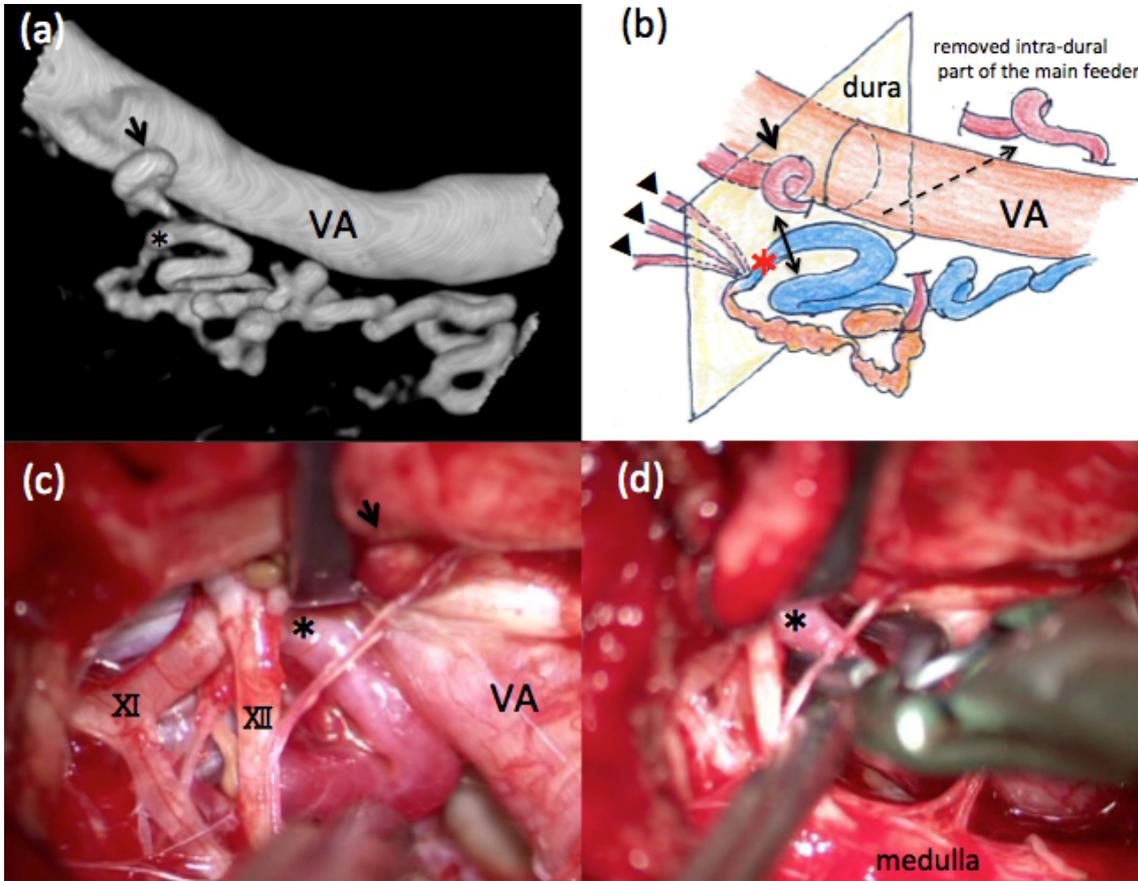


Fig.6

