

症例報告 case report

タイトル：上矢状静脈洞部硬膜動静脈瘻のシャントポイントに対して経静脈的
塞栓術を行うことにより根治が得られた1例

著者名：藤井隆司¹⁾、大石英則¹⁾²⁾、寺西功輔²⁾、矢富謙治²⁾、山本宗孝²⁾

所属：1) 順天堂大学医学部脳神経血管内治療学講座、2) 順天堂大学大学院
医学研究科脳神経外科講座

Authors: Takashi Fujii, M.D.¹⁾, Hidenori Oishi, M.D.¹⁾²⁾, Kosuke Teranishi,
M.D.²⁾, Kenji Yatomi, M.D.²⁾, Munetaka Yamaoto, M.D.²⁾

Affiliation: 1) Department of Neuroendovascular Therapy, Juntendo
University Faculty of Medicine, 2) Department of Neurosurgery, Juntendo
University Faculty of Medicine

[連絡先] = 順天堂大学医学部脳神経外科

[〒113-8421 東京都文京区本郷 2-1-1]

Corresponding author: Department of Neuroendovascular Therapy,
Juntendo University Faculty of Medicine, 2-1-1 Hongo, Bunkyo-ku, Tokyo
113-8421. Japan

E-mail : takashigreengreen@yahoo.co.jp

Keyword: dural arteriovenous fistula, superior sagittal sinus, coiling,
intermediate catheter

「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、筆頭庁舎、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」

和文要旨

目的

上矢状静脈洞部の **venous lacunae** にシャントポイントをもつ硬膜動静脈瘻に対して、コイル塞栓術を施行し根治し得た症例を経験したので報告する。

症例

症例は45歳女性。4カ月前から拍動性耳鳴を自覚し、加療目的で当院を紹介受診した。血管撮影検査では両側中硬膜動脈から **venous lacunae** を経由し上矢状静脈洞へ流出する血流を認めた。4Fr の中間サポートカテーテルの先端を **venous lacunae** に挿入し、マイクロカテーテルを逆行性に右中硬膜動脈に挿入し **venous lacunae** を含めてコイル塞栓を行い、シャント消失が確認できた。

結論

上矢状静脈洞部の **venous lacunae** にシャントポイントを有する症例で、先端をS字状に形成した中間サポートカテーテルを **venous lacunae** 内に留置することで十分な塞栓が可能となった。

I. 緒言

上矢状静脈洞部 (SSS; superior sagittal sinus) 硬膜動静脈瘻は他部位のものと比較して有意に症候性の割合が高く積極的な治療を要する疾患である。今回、我々は両側中硬膜動脈 (MMA; middle meningeal artery) を流入動脈として SSS 近位部の venous pouch にシャントポイントをもつ硬膜動静脈瘻に対して経静脈的アプローチによる venous pouch の選択的コイル塞栓術を施行し根治し得た症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

II. 症例提示

症例は45歳女性。4カ月前から拍動性耳鳴を自覚し、他院を受診、頭部CTA (computed tomography angiography) およびMRA (magnetic resonance angiography) で硬膜動静脈瘻を疑われ、加療目的で当院を紹介受診した。

神経学的には明らかな脱落症状は認めなかった。既往歴としては13年前に下肢静脈瘤がある他には外傷歴を含めて特記事項はなかった。家族歴にも特記事項はなかった。

血管撮影検査では両側MMAを流入動脈としてSSS部のvenous lacunaeへ流入するfeederを認めた。DrainerはSSSで、SSSには閉塞はなく、venous

lacunae を形成しながら順行性の血流を認めた。明らかな皮質静脈逆流は認めず、Borden type1、Conard type2a の硬膜動静脈瘻の症例と診断した (Figure 1 ABCD)。両側 ECAG の 3 dimensional ECAG の fusion 画像ではシャントポイントは左 venous lacunae に限局しており右 MMA はいくつかの細かな血管を介してそのシャントポイントに限局していた (Figure1 EF)。SSS は内頸動脈撮影後の静脈相でも描出があり、正常還流を担っているものと考えられた。

拍動性耳鳴に対する加療の希望が強く治療を行う方針とした。右大腿静脈経由に Axcelguide 6Fr 80cm STR (Medikit, Tokyo) を右内頸静脈に留置した。同軸に Cerulean G 6Fr 115cm STA (Medikit, Tokyo) /Cerulean G 4Fr 135cm STA (Medikit, Tokyo) を Radifocus 0.035 inches 150cm angle E type (Terumo, Tokyo) の誘導下に右 S 状静脈洞—横静脈洞—上矢状静脈洞を通りシャント近傍へ留置した。ガイドワイヤーで少し探ると venous lacunae に入り S 字状に形成した Cerulean G 4Fr 135cm STA (Medikit, Tokyo) の先端が挿入できた (Figure 2A)。Excelsior SL-10 2M (Striker, Fremont, CA, USA) を CHIKAI 0.014 inches 200cm (ASAHI intec, Aichi) と GT wire 0.012 inches preshape double angle (Terumo, Tokyo) の誘導下に右 MMA に逆行性に挿入しコイル塞栓を行った。その後、同様に左 MMA への挿入も試みたがこちらは選択できなかった。右 MMA 塞栓術後に左 ECAG 施行したとこ

ろ未だシャントの残存が確認できた (Figure 2B)。最後に venous lacunae 自体のコイル塞栓術を行った (Figure 2 C)。これによりシャントの消失が確認できた (Figure 3ABCD)。術直後から拍動性耳鳴は消失し、経過良好で自宅退院となった。

III. 考察

SSS 部硬膜動静脈瘻は頭蓋内硬膜動静脈瘻の 3.2-4.7%の頻度で発生する疾患で、出血発症、静脈性梗塞や痙攣などの症状を呈する頻度が高いとされる¹⁾²⁾。Hiramatsu らによると、多変量解析での odds ratio が出血で 4.3、静脈性梗塞で 4.3、痙攣で 4.0 と他部位と比較しても有意に症候性となる危険性が高い²⁾。

脳卒中治療ガイドライン 2015 において各部位における外科的治療か血管内治療かの大まかな指針があるなかで、SSS 部硬膜動静脈瘻に対する手術選択のコンセンサスの記載はない³⁾。しかし硬膜動静脈瘻に対する治療戦略の原則として、sinus type は血管内治療が優先され、non-sinus type には外科的治療が優先されることを考慮すると、罹患静脈が閉塞していない上矢状静脈洞に対しての治療は血管内治療が第一選択とされることが多い^{4) -6)}。SSS 部硬膜動静脈瘻に対する血管内治療には経動脈的に NBCA (n-butyl-2-cyanoacrylate) など

の液体塞栓材料を流出静脈まで注入することで根治を目指す方法と経静脈的塞栓術（transvenous embolization: TVE）の方法がある。TVEには罹患静脈洞の出口を閉塞する outflow occlusion と、シャントが流入する局所を閉塞する inflow occlusion に分けられ、近年では特にシャントポイントを閉塞させる inflow occlusion で、罹患静脈洞をできる限り温存する方法が注目されている⁴⁾。本症例は上矢状静脈洞部前半部の硬膜動静脈瘻であり、SSSが正常静脈還流を担っていることを考慮すると、罹患静脈洞の outflow occlusion は困難な症例であった。両側 MMA の屈曲蛇行が強く、シャント本体近傍までマイクロカテーテルを誘導する事が困難であり、液体塞栓材料では根治が得られにくい事、シャントは MMA から venous lacunae に集簇している為、経静脈的な塞栓により根治を目指す方法を選択した。

venous lacunae などの静脈嚢にシャントポイント有する硬膜動静脈瘻について過去の報告では、SSS 部硬膜動静脈瘻については我々が渉猟した限りで文献は認めなかったが、海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻についてはいくつかの報告がある⁷⁻¹⁰⁾。その中でも Satow らによる報告では海綿状脈洞部に硬膜動静脈瘻を有する疾患に対して経静脈的コイル塞栓術を行い、14 例中 12 例で venous pouch にシャントポイントを認めており、この部位にコイル塞栓術を行うことで全例に完全閉塞を得られたと報告している⁷⁾。venous lacunae に対してコイ

ル塞栓術を行うの意義にはコイルの使用量を減らして、コイルによる mass effect を減らすことができる上に、sinus の順行性の血流を保ちつつ、高い根治率を得られるといった利点がある。今回の症例では SSS の順行性を保つことは必須であるが、venous lacunae への塞栓はその根治を目指す上で有効な治療手段と考えられた。

さらに本症例においては Cerulean G 4Fr 135cm STA (Medikit、Tokyo) を S 字状に形成することでその先端部を venous lacunae に直接挿入することでコイル塞栓術を行うことに成功した。本症例のように病変部までのアクセスに距離があるような症例に対して、中間サポートカテーテルを co-axial system で使用する方法の有用性が報告されている^{11)・13)}。そのメリットとしては、アクセス血管の屈曲部にかかるマイクロカテーテルの摩擦や抵抗性を減ずることで、マイクロカテーテルの操作性が向上し、さらに guiding system のサポート性能が向上するため病変部へのアクセスが容易となることがあげられる。また今回の症例では中間サポートカテーテルの先端を S 字状に形成することで、venous lacunae 内へ、その先端を留置することができた。Venous lacunae にその先端を留置することでマイクロカテーテルの支持性が向上し、venous lacunae 内に存在する shunt point を経由して右 MMA および venous lacunae の tight packing が可能となった。左 MMA の塞栓についても試みたが、おそ

らく右 MMA をコイル塞栓した段階で shunt point が狭小化され、左 MMA への経路が困難となったものと考えられた。本症例のように経静脈的に動脈内からコイル塞栓を行った症例は過去に報告例がないが、経動脈的に静脈内を塞栓した症例や¹⁴⁾、経静脈的に shunt point を塞栓した上で、液体塞栓材料を動脈内へ静脈側から塞栓した症例の報告例は見受けられた¹⁵⁾。流出静脈内に対してコイル塞栓を行う上での困難性として塞栓術中にコイル塊が動脈からの血流により静脈側に動いてしまうことが報告されている¹⁶⁾¹⁷⁾。経静脈的に流入血管を塞栓することのメリットには、確実に shunt point を閉塞しうることに加えて、特に high flow shunt をもつような症例に対して flow control により動脈圧を軽減することおよび shunt point にコイルをアンカーさせることでコイルやマイクロカテーテルの逆流を防ぐことにある。これらのことから経静脈的に流入動脈をコイル塞栓することは有効な治療戦略と考えられた。

IV. 結語

本症例では SSS 部硬膜動静脈瘻の venous lacunae にシャントポイントを有する症例で、中間サポートカテーテルをシャントポイントに留置することで、十分な塞栓を行い根治が得られた。特に中間サポートカテーテルの先端部を S 字状に形成することで、その先端部を venous lacunae に留置することがで

き、それにより流入動脈、shunt pointに加えて venous lacunae を tight packing することができた。SSS 部硬膜動静脈瘻に対する治療報告例は少なく、今後の治療集積が期待される。

「利益相反開示」：共同著者は全員、日本脳神経外科学会へのオンラインによる利益相反申告を済ませています。共同著者の1人（著者A）は、ストライカー社から年間の日当（講演料など）として合計100万円以上、ストライカー社から寄付講座の代表者として年間200万円以上の寄付金を、メディキット社から200万円以上の寄付講座への奨学寄附金を受けている。

その他の共著者には利益相反はありません。

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 (Tokyo) 2011; 20: 12-19.
- 2) Hiramatsu M, Sugi K, Hishikawa T, et al. Epidemiology of dural arteriovenous fistula in Japan: Analysis of Japanese registry of neuroendovascular therapy (JR-NET2). Neurol Med Chir (Tokyo) 2014;

- 54: 63-71.
- 3) Japanese guidelines for the management of stroke 2015 : 6-2 dural arteriovenous fistula 2015; 165-168.
 - 4) Kuwayama N, Akioka N, Kashiwazaki D, et al. Front line of the treatment for dural arteriovenous fistulas. *Jpn J Neurosurg (Tokyo)* 2017; 26: 125-133.
 - 5) 日本脳神経血管内治療学会. 循環器病研究班編 脳血管内治療診療指針 2009. www.jnet-ejournal.org/backnumber/3-S/pdf/3-S-047.pdf (参照日 : 2018 年 1 月 14 日)
 - 6) Miyachi S. Endovascular treatment for dural arteriovenous fistula. *Brain Nerve*. 2008; 60(8): 907-914.
 - 7) Satow T, Murano Kenichi M, Matsunaga T, et al. Superselective shunt occlusion for the treatment of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae. *Neurosurgery* 2013; 73: 100-105.
 - 8) Nakamura M, Tamaki N, Kawaguchi T, et al. Selective transvenous embolization of dural carotid-cavernous sinus fistulas with preservation for sylvian venous outflow. Report of three cases. *J Neurosurg* 1998; 89(5): 825-829.

- 9) Piske RL, Campos CM, Chaves JB, et al. Dural sinus compartment in dural arteriovenous shunts: a new angioarchitectural feature allowing superselective transvenous dural sinus occlusion treatment. *AJNR Am J Neuroradiol* 2005; 26(7): 1715-1722.
- 1 0) Agid R, Willinsky RA, Haw C, et al. Targeted compartmental embolization of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae using transfemoral medial and lateral facial vein approaches. *Neuroradiology* 2004; 46(2): 156-160.
- 1 1) Hui FK, Schuette AJ, Spiotta AM, et al. Flexible tip guides and intermediate catheters: two center experience and a proposed taxonomy. *J Neurointerv Surg* 2014; 6(8): 618-623.
- 1 2) Lin LM, Colby GP, Huang J, et al. Ultra-distal large-bore intracranial access using the hyperflexible Navien distal intracranial catheter for the treatment of cerebrovascular pathologies: a technical note. *J Neurointerv Surg* 2014; 6(4): 301-307.
- 1 3) Chandran A, Puthuran M, Eldridge PR, et al. Distal access using hyperflexible atraumatic distal tip with optimized proximal stability of the treatment of cerebral vascular diseases: a technical note. *J*

Neurointerv Surg 2016; 8(7): 718-721.

- 1 4) Fukai J, Terada T, Kuwata T, et al. Transarterial intravenous coil embolization of dural arteriovenous fistula involving the superior sagittal sinus. Surg Neurol. 2001; 55(6): 353-358.
- 1 5) Abecassis IJ, Nerva JD, Ghodke BV, et al. The dural microcatheter technique for transvenous embolization of dural arteriovenous fistulae. J Neurointerv Surg. 2017; 9(6): 578-582.
- 1 6) Tanaka, K, Yasuda R, Morikawa A, et al. A case of tentorial dural arteriovenous fistula treated by transcortical venous embolization. JNET. 2015; 9: 319-325.
- 1 7) Yamakawa A, Fujita A, Hiromoto T, et al. Tentorial dural arteriovenous fistula successfully treated with transvenous embolization using a double catheterization technique through venous drainage: a case report. No Shinkei Geka. 2017; 45(7): 583-589.

Figure legend

Figure 1

AB: Right external carotid angiogram (ECAG) showed the arteriovenous fistula between right middle meningeal artery (MMA) and right venous lacunae. There was no obstruction superior sagittal sinus (SSS) to sigmoid sinus.

CD: Left ECAG showed the arteriovenous fistula between left MMA and right venous lacunae.

EF: The fusion 3-dimensional image of right and left ECAG showed the shunt point was right venous lacunae. The left MMA shunted to right venous lacunae via the same shunt point was fed by right MMA.

Figure 2

A: The intermediate catheter, which was coaxial system Cerulean G 4Fr (Medikit, Tokyo) with Cerulean DD6 6Fr (Medikit, Tokyo) set the venous pouch with SSS.

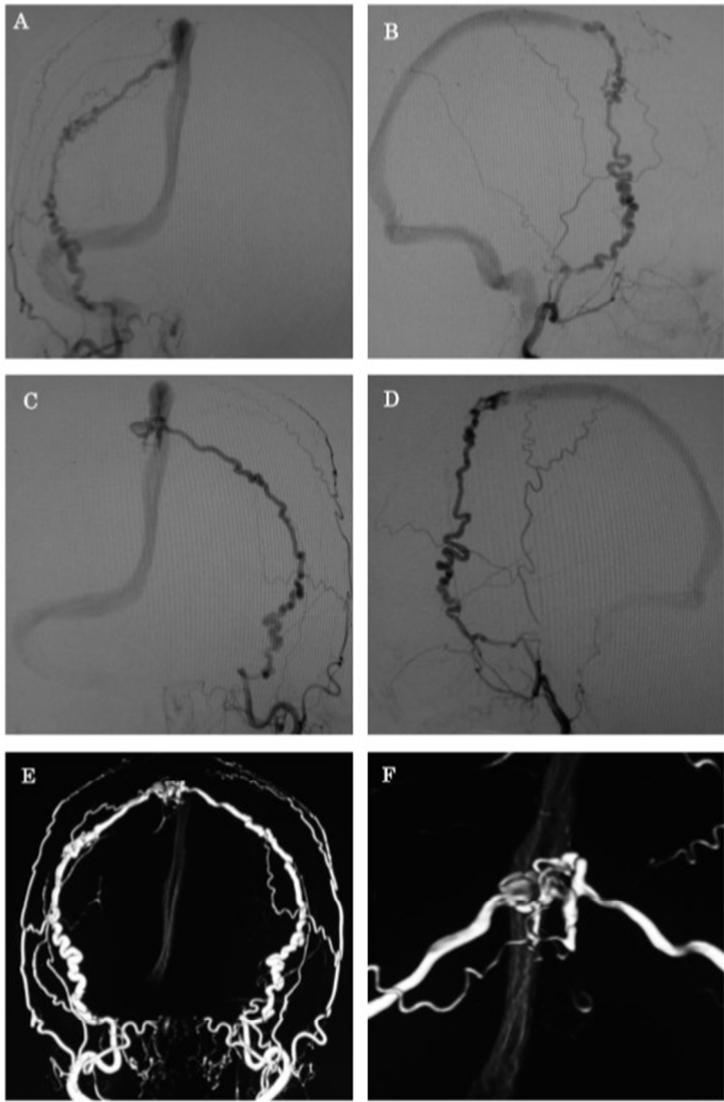
B: Left ECAG showed the shunt between left MMA and SSS existed after right MMA coil embolization

C: The microcatheter inserted the venous pouch and tight coil embolization from right MMA to venous lake was performed.

Figure 3

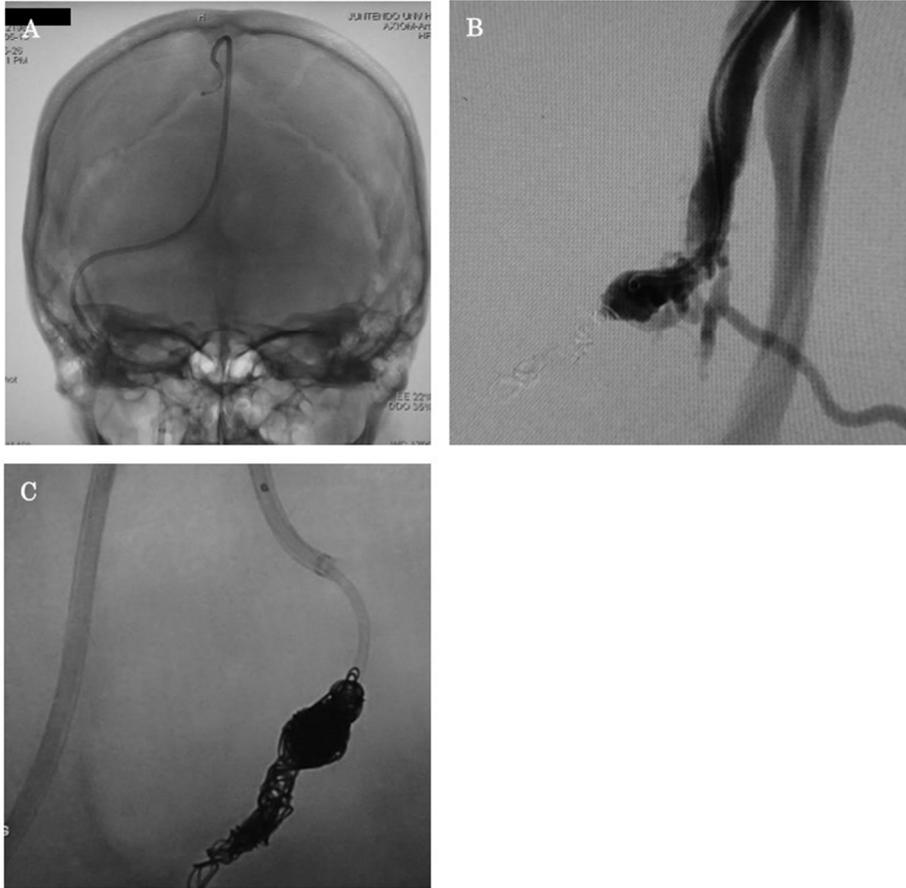
ABCD: Bilateral ECAG showed the shunt was diminished after coil embolization.

Figure 1



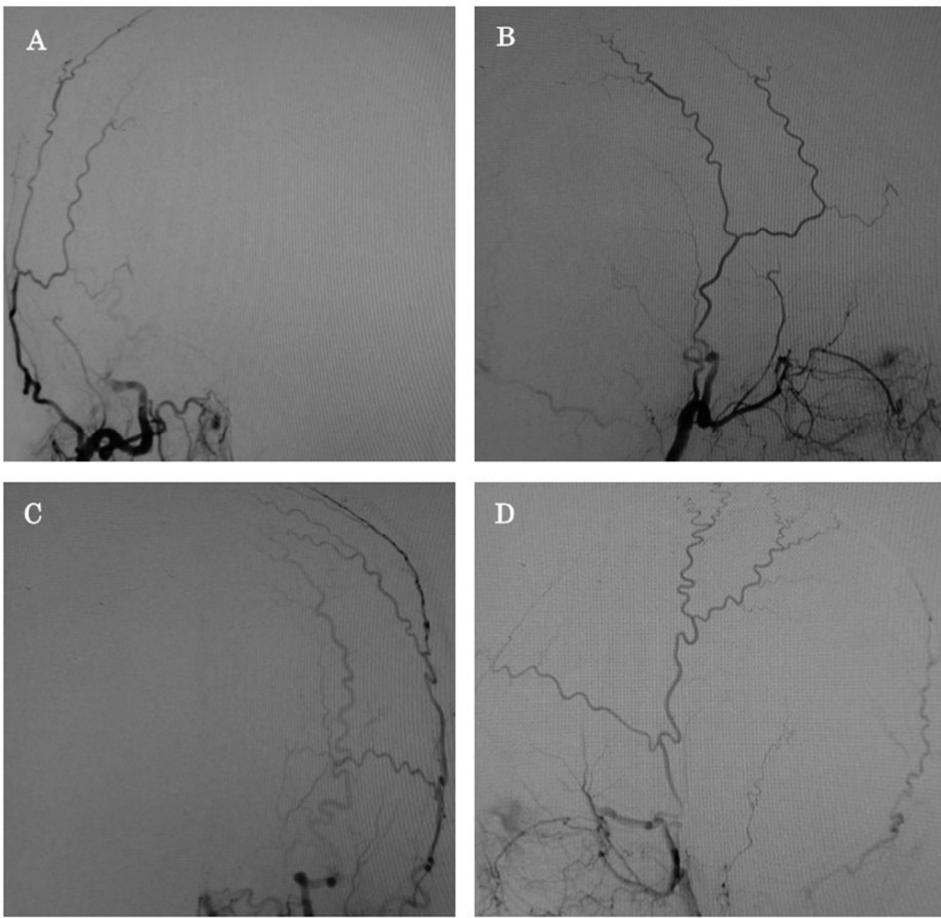
169x237mm (96 x 96 DPI)

Figure 2



229x223mm (96 x 96 DPI)

Figure 3



207x211mm (96 x 96 DPI)