

1) テクニカルノート

2) 眼球突出で発見された眼窩尖部硬膜動静脈瘻に対して経動脈的塞栓術で根治した一例

3) 寺門利継¹、中居康展¹、塚田和明¹、西平崇人¹、上月暎浩¹、古西崇寛²、椎貝真成²、上村和也¹

4) 筑波メディカルセンター病院脳神経外科¹
筑波メディカルセンター病院放射線科²

5) 寺門利継

筑波メディカルセンター脳神経外科

〒300-8558 茨城県つくば市天久保 1-3-1

Tel: 029-851-3511

Fax: 029-858-2773

Email: toshi_0211jp@yahoo.co.jp

6) Key words: Orbital dural arteriovenous fistula、n-butyl 2-cyanoacrylate、Trans-arterial embolization

7) 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。

【目的】硬膜動静脈瘻に対して液体塞栓物質を用いて経動脈的塞栓術を行う際に、内頸動脈と外頸動脈との間の吻合を一時遮断することで安全に治療が行えた一例を経験したので報告する。

【症例】51歳男性。右眼の充血、眼球突出で発症し、右眼窩尖部硬膜動静脈瘻と診断した。上眼窩裂動脈から n-butyl 2 - cyanoacrylate を用いた塞栓をおこなう際に、眼動脈はコイルで、Inferolateral trunk は内頸動脈に留置したバルーンで遮断することで逆流を防ぎ根治が得られた。

【結論】硬膜動静脈瘻に対して液体塞栓物質による経動脈的塞栓術をおこなう際には、危険な吻合をよく理解した上で治療を行うことが重要である。

諸言

硬膜動静脈瘻（dural arteriovenous fistula：dAVF）に対して液体塞栓物質を用いた経動脈的塞栓術（Trans-arterial embolization：TAE）を行う場合、根治のためにはシャントを超えて十分に静脈側まで液体塞栓物質を到達させる必要がある。特に眼窩周囲は眼動脈、内頸動脈、外頸動脈の間に様々な吻合が存在しており、治療に関してはこれらの血管解剖の理解が重要である。今回我々は、眼窩尖部 dAVF に対して、内頸動脈、眼動脈への逆流をコイルとバルーンで一時的に抑えること

で安全に治療が行えた一例を経験したので、治療戦略を含めて報告する。

症例提示

51歳男性。頭部外傷の既往はない。半年前からの右眼の充血、眼球突出を主訴に撮影したMRIで右上眼静脈（Superior orbital vein：SOV）の拡張を認めdAVFが疑われた。複視や眼球運動障害は認めなかった。CTAでは右眼尖部にシャントの存在が疑われ（Fig1A, B）、脳血管撮影を実施した。右外頸動脈系からは中硬膜動脈前枝、上眼窩裂動脈からの流入動脈が眼窩尖部のシャントに集簇していた（Fig2A-C）。また内頸動脈系からはInferolateral trunk（ILT）、眼動脈からrecurrent meningeal arteryを介してシャントに集簇していた（Fig2D-E）。静脈流出路は下眼静脈から上眼静脈を経由して、sphenobasal sinusへと流出する経路のみであり、顔面の静脈や海綿静脈洞との直接の交通は認めなかった（Fig. 2E,F）。これらの所見から眼窩尖部dAVFと診断した。治療にあたり、経静脈的塞栓術（Transvenous embolization：TVE）は静脈の屈曲蛇行から困難であると考えられ、TAEはILTや眼動脈と外頸動脈系の危険な吻合の存在がリスクであると考えられた。そこであらかじめ中硬膜動脈前枝をコイルで塞栓し外頸動脈からの流入血管を上眼窩裂動脈のみに単純化した上で、n-butyl 2

- cyanoacrylate (NBCA) を用いて TAE を行うこととした。その際に、危険な吻合となりうる眼動脈にはコイルを留置して網膜動脈への逆流を防ぎ、内頸動脈の ILT 分岐部にはバルーンを拡張させて血流を一時遮断することで NBCA の迷入リスクを低減することとした (Fig3)。治療は全身麻酔下を実施した。右大腿動脈に 5Fr シースを留置し、5Fr ガイディングカテーテル (MEDIKIT, 東京) を右外頸動脈に誘導した。左大腿動脈からは 5Fr FUBUKI Dilator kit (朝日インテック, 東京) を右内頸動脈に誘導した。まず中硬膜動脈本幹に 2.8Fr / 2.6Fr Masters HF (朝日インテック, 東京)、中硬膜動脈前枝に 1.8Fr / 1.6Fr Carnelian Marvel S (東海メディカルプロダクツ, 愛知) を誘導して Barricade complex SR finishing coil (Balt, Irvine, California, USA) を用いて塞栓した。次に上眼窩裂動脈の末梢まで Carnelian Marvel S を誘導した上で、眼動脈に 2.7Fr / 1.5Fr Marathon (Medtronic, Minneapolis, MN, USA) を誘導し、網膜動脈と recurrent meningeal artery の間で Barricade complex SR finishing coil 3mm×10cm を離脱せず挿入して、NBCA の逆流を抑えるようにした。また、内頸動脈の ILT 分岐部で SHOURYU HR 7mm×7mm (カネカメディックス, 大阪) を拡張させ血流を遮断した。この状態で上眼窩裂動脈から撮影をおこない、網膜動脈や ILT の描出がないことを確認してから、33% NBCA Lipiodol 混合液で TAE

をおこなった。NBCAは静脈側まで浸透しシャントの完全閉塞が得られた。眼動脈に挿入したコイルは回収し、内頸動脈撮影では眼動脈の順行性の血流が保たれていることを確認した(Fig4)。術後CTでもNBCAが眼窩尖部のシャント部分に到達していることが確認できた(Fig5)。術後合併症はなく、症状は軽快し自宅退院となった。

考察

眼窩尖部dAVFは静脈灌流に上眼静脈、下眼静脈が関与することから眼症状(眼球突出、眼球結膜充血など)で発症する。さらにシャント部位が海綿静脈洞近傍であるため、海綿静脈洞部dAVFとの鑑別が重要となる。海綿静脈洞部dAVFが疑われた350例に対して画像検査をおこなった結果、1例(0.3%)のみが眼窩尖部dAVFであったと報告されている¹⁾。実際には、眼窩尖部dAVFは眼窩内にシャントポイントを持つdAVFの一部として報告されているケースが多く、海綿静脈洞部d-AVFと診断されている症例を含めると、過小に診断されている可能性がある。眼窩内dAVF26例の報告では、流入動脈は外頸動脈系からは中硬膜動脈、顎動脈分枝、内頸動脈系からは眼動脈、内頸動脈の分枝で、眼窩内にシャントを形成し、SOVもしくはIOVに流出し、海綿静脈洞への流出は認めないことが特徴として挙げられている。治療に関

しては TVE、TAE、手術があるが、それぞれ治癒率が 70%、30%、35%と成績は満足できるものではない 2)。TVE に関してはアプローチに工夫を要し、facial vein などからの TVE 3,4)、SOV、IOV の直接穿刺 2,5,6,7)などの方法が用いられていた。本症例は眼窩内での SOV、IOV の屈曲が強く、海綿静脈洞との交通もないことから TVE は困難であると考えられた。手術に関しては血管内治療でのアプローチが困難、もしくは静脈瘤などが mass effect を呈している症例のみで選択されていた 8,9,10)。TAE に関しては、眼動脈からの NBCA を用いた塞栓で眼窩内動静脈奇形 (Arteriovenous malformation: AVM) が完治した症例があるものの 11)、眼動脈から Polyvinyl alcohol foam (PVA)、Onyx を用いて塞栓した際に、網膜動脈閉塞を引き起こし視力障害を呈した報告 1,12) もあり、基本的に合併症リスクは高いと考えられる。眼窩尖部 dAVF は内頸動脈系と外頸動脈系の吻合が多くみられるために、液体塞栓物質を用いた TAE をおこなう場合には、これらの血管への逆流を防ぐ工夫が必須である。

まず、今回の流入動脈となっている上眼窩裂動脈は、顎動脈から直接、もしくは正円孔動脈との共通幹から分枝しており、ILT anteromedial branch と吻合を持つという特徴がある 13)。

その後海綿静脈洞もしくは deep recurrent ophthalmic artery を介して眼動脈へ流入をする。また ILT anteromedial branch に

関しては上眼窩裂に向かって走行をし、上眼窩裂を走行する動
眼神経、滑車神経、三叉神経第 1 枝、外転神経を栄養している
14)。また、もう一つの流入動脈である中硬膜動脈前枝は上眼窩
裂を通る **recurrent meningeal artery** や **cranio-orbital foramen**
を通る **meningo-lacrimonal artery** を介して眼動脈の涙腺枝と吻
合する 15, 16)。よって上眼窩裂動脈もしくは中硬膜動脈前枝か
ら液体塞栓物質を用いた TAE をおこなう場合には ILT、眼動脈
への逆流に注意する必要がある。眼動脈への逆流を防ぐために
本症例ではコイルを離脱せずに挿入しているが、カテーテル挿
入手技や、コイルでの一時的な遮断でも網膜動脈の虚血のリス
クがあるため、十分なヘパリン化を行うこと、眼動脈へのカテー
テル挿入が困難な場合には、手技に固執せず治療方針を切り替
えることを考慮する必要がある。また、NBCA での TAE に関し
ては経験的にコイルの留置が NBCA の浸透を遮断するのに有効
と考えているが、血流の遮断としては不十分であることから、
NBCA の圧入を行わないように心掛けることが重要である。
DAVF に対する TAE をおこなう際の工夫として、**high-flow** シャ
ントに対してバルーンを近位血管で閉塞させた状態でおこなう
方法 17) や、**double lumen** のバルーンカテーテルを用いて血流
コントロール下に塞栓をおこなう方法 18) などが報告されてい
る。これらは専ら近位血管への液体塞栓物質逆流を防止しつつ

シヤントへの浸透を容易にする手技である。本症例のように液体塞栓物質を用いた TAE 時に危険な吻合への迷入対策でコイルやバルーンを用いる手技は、コイル、バルーン留置による血栓症リスクや手技に伴う血管損傷などのリスクに注意すれば、一時的な血流遮断のみで正常血管を温存でき有用な方法と考えられた。将来的に眼動脈などの細血管でも使用可能な細径のバルーンなどが開発されれば、より確実に治療が行えるようになると思われる。

結語

眼窩尖部 dAVF に対して眼動脈、ILT への逆流を防ぐために、コイル、バルーンで一時遮断をおこなった上で TAE をおこない根治を得た症例を経験した。TAE の際には病変周囲の血管解剖および危険な血管吻合の理解が極めて重要である。

利益相反の開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

文献

- 1) Kobkitsuksakul C, Jiarakongmun P, Chanthanaphak E, et al. Noncavernous arteriovenous shunts mimicking carotid cavernous fistulae. *Diag Interv Radiol*, 2016; 22: 555–559.
- 2) Lv X, Li W, Liu A, et al. Endovascular treatment evolution for pure intraorbital arteriovenous fistula: Three case reports and literature review. *Neuroradiol J*, 2017; 30(2): 151-159.
- 3) Lin C J, Blanc R, Clarençon F, et al. Transvenous embolization of an intraorbital arteriovenous fistula using Onyx. *J Clin Neurosci*, 2010; 17(6): 783–785.
- 4) Yamamoto Y, Yamamoto N, Satomi J, et al. Dural arteriovenous fistula in the superior orbital fissure: A case report. *Surg Neurol Int*, 2018; 9: 95.
- 5) Lv M, Jiang C, Liu D. et al. Direct percutaneous transorbital puncture under fluoroscopic guidance with a 3D skull reconstruction overlay for embolization of intraorbital and cavernous sinus dural arteriovenous fistulas. *Interv Neuroradiol*, 2015; 21(3): 357-361.
- 6) Subramainan PS, Gailloud PH, Heck DV, et al. Cook detachable coil embolization of a symptomatic, isolated orbital arteriovenous fistula via a superior ophthalmic vein approach. *Neuroradiology*, 2005; 47: 62-65.
- 7) Naqvi J, Laitt R, Leatherbarrow B, et al. A case of a spontaneous intraorbital arteriovenous fistula: Clinico-

- radiological findings and treatment by transvenous embolization via the superior ophthalmic vein. *Orbit*, 2013; 32: 124-126.
- 8) Hamada J, Morioka M, Kai Y, et al. Spontaneous arteriovenous fistula of the orbit: case report. *Surg Neurol*, 2006; 65: 55-57.
- 9) Wigton EH, Wells JR, Harrigan MR, et al. Diagnosis and management of an intraorbital vascular fistula. *Ophthalmol Plast Reconstr Surg*, 2012; 28: e39-e41.
- 10) Mashra SS, Panigrahi S, Satpathy PC, et al. Intraorbital arteriovenous fistula with thrombosed varix: Diagnosis and treatment without catheter angiography in a developing country. *Surg Neurol Int*, 2013; 4: 107.
- 11) Sato K, Matsumoto Y, Kondo R, et al. Intraorbital arteriovenous malformation treated by transarterial embolization: Technical case report. *Neurosurgery*, 2011; 68(2 Suppl Operative): 383-387.
- 12) Kim AW, Kosmorsky GS. Arteriovenous communication in the orbit. *J Neuroophthalmol*, 2000; 20: 17-19
- 13) Kiyosue H, Tanoue S, Hongo N, et al. Artery of the superior orbital fissure: An undescribed branch from the pterygopalatine segment of the maxillary artery to the orbital apex connecting with the anteromedial branch of

- the inferolateral trunk. *Am J Neuroradiol*, 2015; 36(9): 1741–1747.
- 14) Lasjaunias P, Berenstein A, terBrugge KG. Surgical Neuroangiography. Vol.1 2nd ed. Berlin, Springer, 2001, p414-25.
- 15) Perrini P, Cardia A, Fraser K, et al. A microsurgical study of the anatomy and course of the ophthalmic artery and its possibly dangerous anastomoses. *Journal of Neurosurgery*, 2007; 106(1): 142–150.
- 16) Geibprasert S, Pongpech S, Armstrong D, et al. Dangerous extracranial-intracranial anastomoses and supply to the cranial nerves: Vessels the neurointerventionalist needs to know. *Am J Neuroradiol*, 2009; 30(8): 1459–1468.
- 17) Deng JP, Zhang T, Li J, et al. Treatment of dural arteriovenous fistula by balloon-assisted transarterial embolization with Onyx. *Clin Neurol Neurosurg*, 2013; 115(10): 1992–1997.
- 18) Kim JW, Kim BM, Park KY, et al. Onyx Embolization for Isolated Type Dural Arteriovenous Fistula Using a Dural-lumen Balloon Catheter. *Neurosurgery*, 2016; 78(5): 627-636.

Figure1

A、B：CTAでは眼窩尖部にシャントポイント（矢印）が疑われる。静脈灌流はIOVからSOVへ流れる経路で海綿静脈洞は関与していない。

Figure2

外頸動脈撮影では中硬膜動脈前枝（矢頭）、上眼窩裂動脈（矢印）からの流入動脈が1か所にシャント（アスタリスク）を形成している（A：正面像、B：側面像）。C：外頸動脈撮影の3D rotational angiography (3DRA)の冠状断像では上眼窩裂動脈が上眼窩裂を通過してシャントポイントへ流入している（矢印）。D—E：内頸動脈撮影ではILT（矢印）と眼動脈からの recurrent meningeal artery（矢頭）が同じシャントポイント（アスタリスク）へ流入している。E、F：流出路はIOV（矢印）を逆行し、SOV（矢頭）に流れ順行性に sphenobasal sinus（黒矢印）へ灌流している。

Figure3：今回の症例の治療方針

A：今回の症例のシェーマ。B：まず中硬膜動脈前枝をコイルで feeder occlusion とする。C：ILT分岐部で SYOURYU を拡張し、眼動脈の recurrent meningeal artery と網膜動脈の間をコイルでブロックする。D：上眼窩裂動脈から NBCA で静脈側まで塞栓を行う。

眼動脈：Ophthalmic a、中硬膜動脈：MMA、上眼窩裂動脈：ASOF、網膜動脈：retinal artery、recurrent meningeal artery：RMA、内頸動脈：ICA、外頸動脈：ECA

Figure4

A：治療中の内頸動脈撮影。白矢印は眼動脈と網膜動脈分岐部、白矢頭はILT分岐部。B：内頸動脈はballoonで（白矢頭）、眼動脈はコイルで（白矢印）ブロックしている。黒矢印は中硬膜動脈前枝に留置したコイル。C：上眼窩裂動脈からの撮影ではシャントへの血流のみでILTや眼動脈への逆流は認めない。D：33%NBCAで静脈側まで十分に塞栓した。E、F：治療後の外頸動脈、内頸動脈撮影ではシャント消失している。

Figure5

術後CT：NBCA castは眼窩尖部（黒矢印）にあり、シャントは海綿静脈洞内にはない。黒矢頭は中硬膜動脈前枝に挿入したコイル。

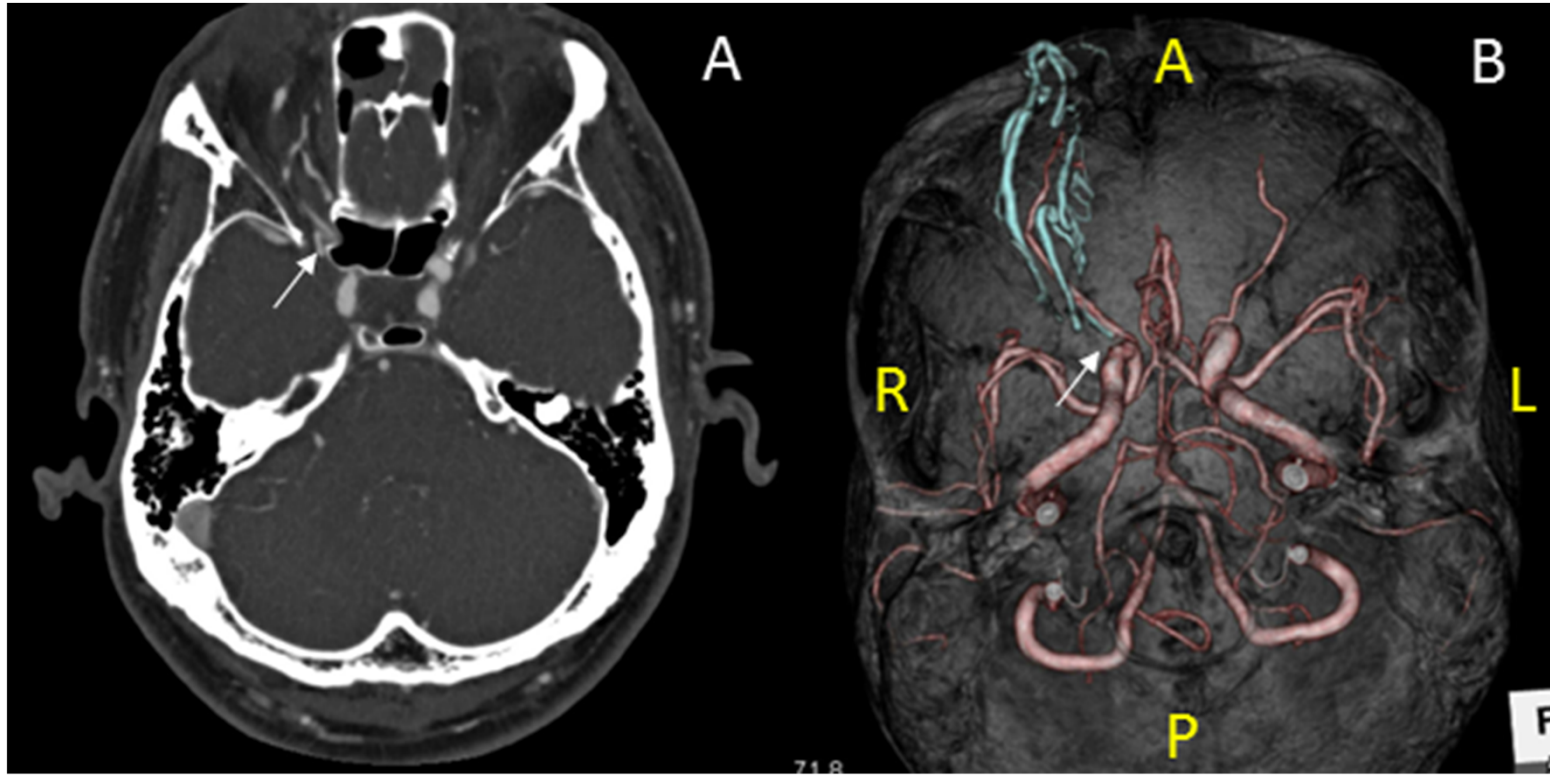


Fig.1

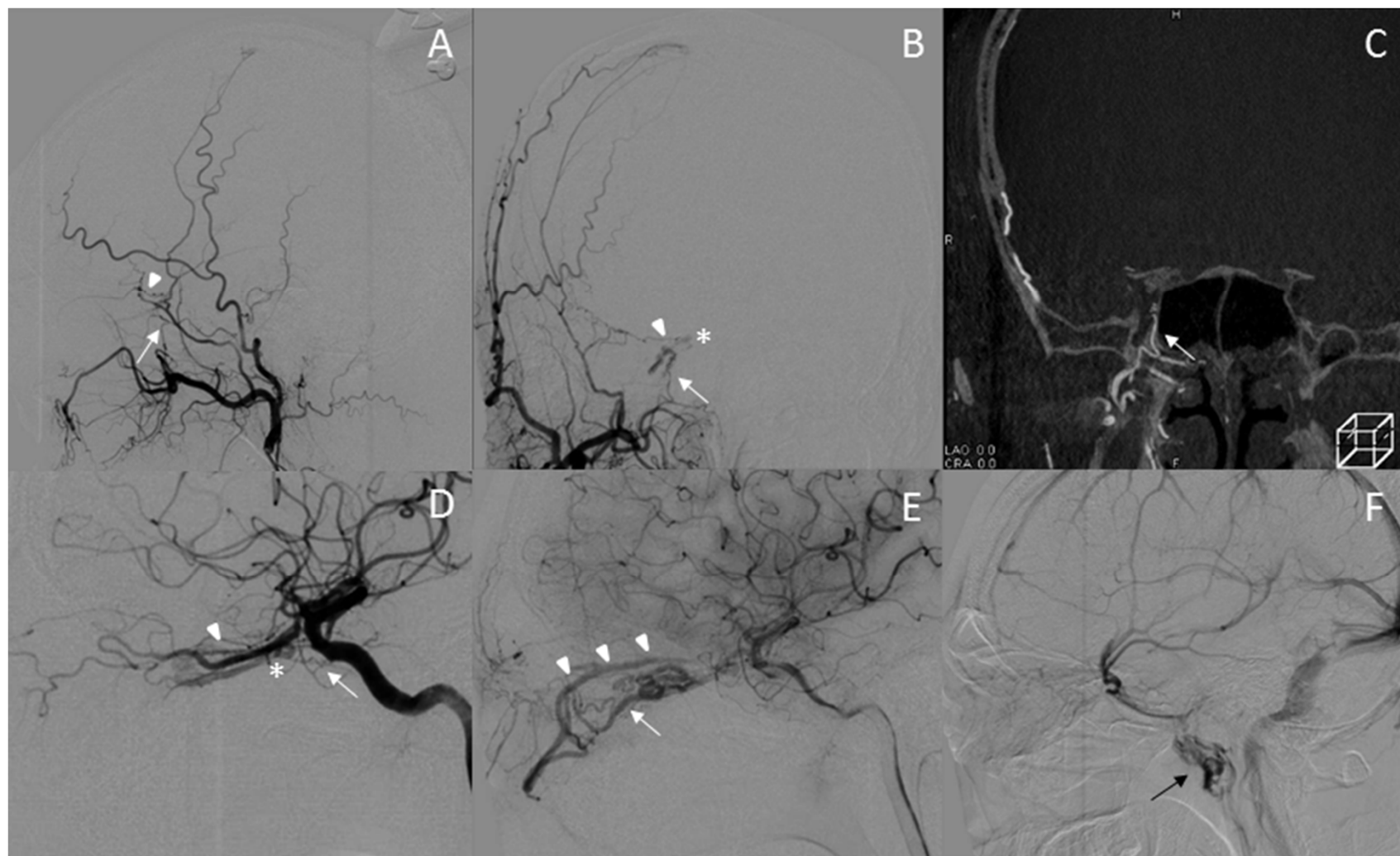


Fig.2

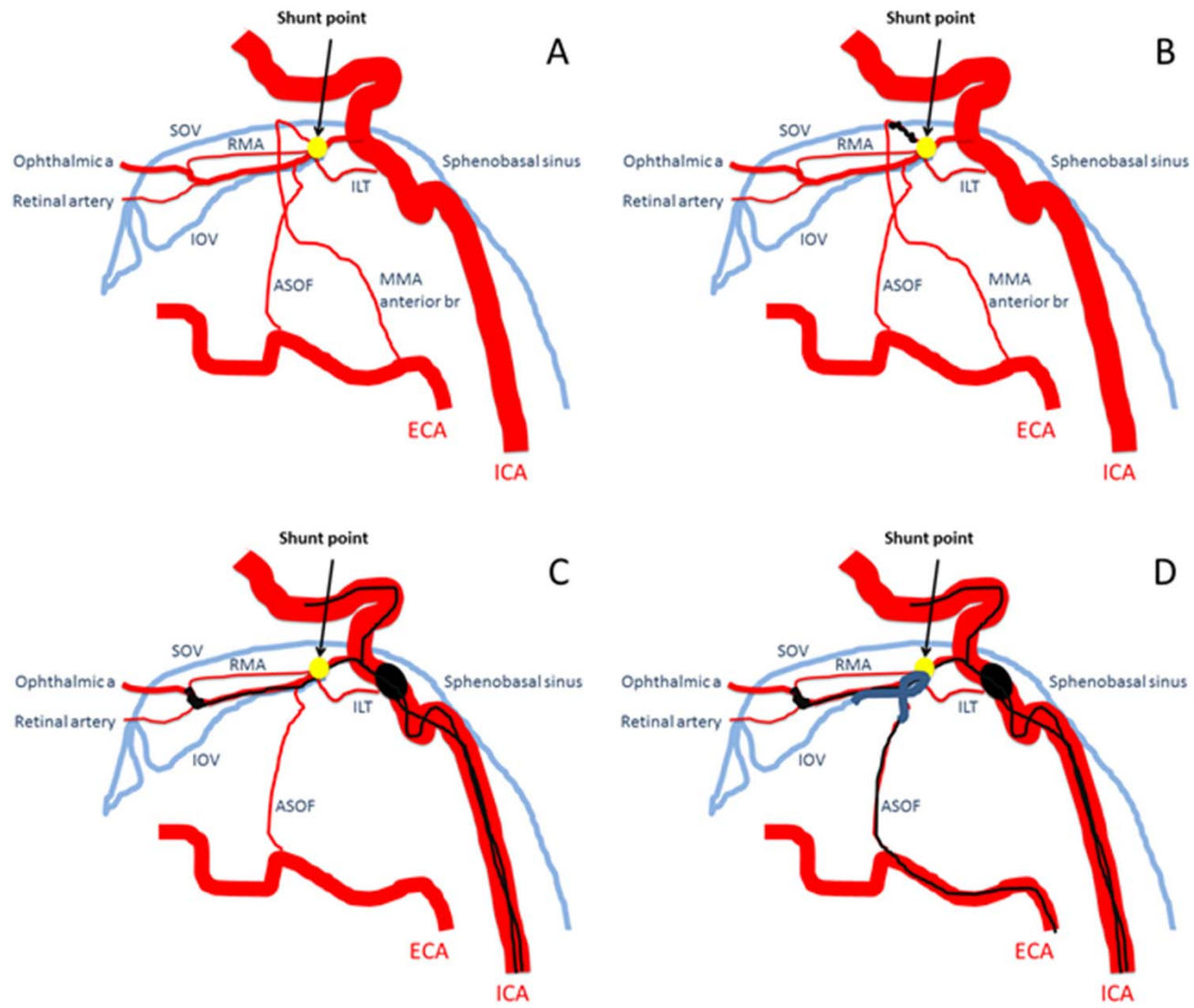


Fig.3

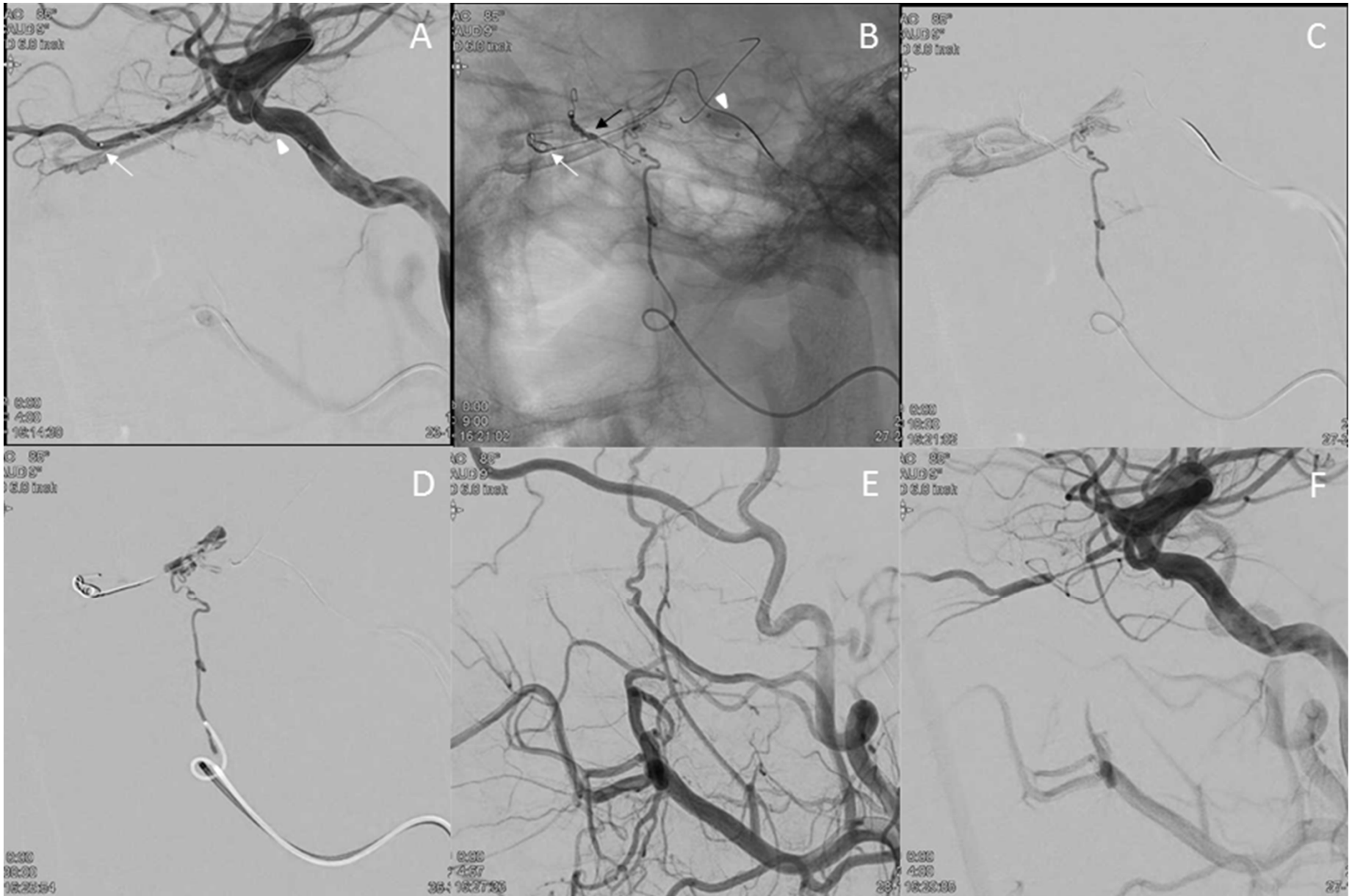


Fig.4

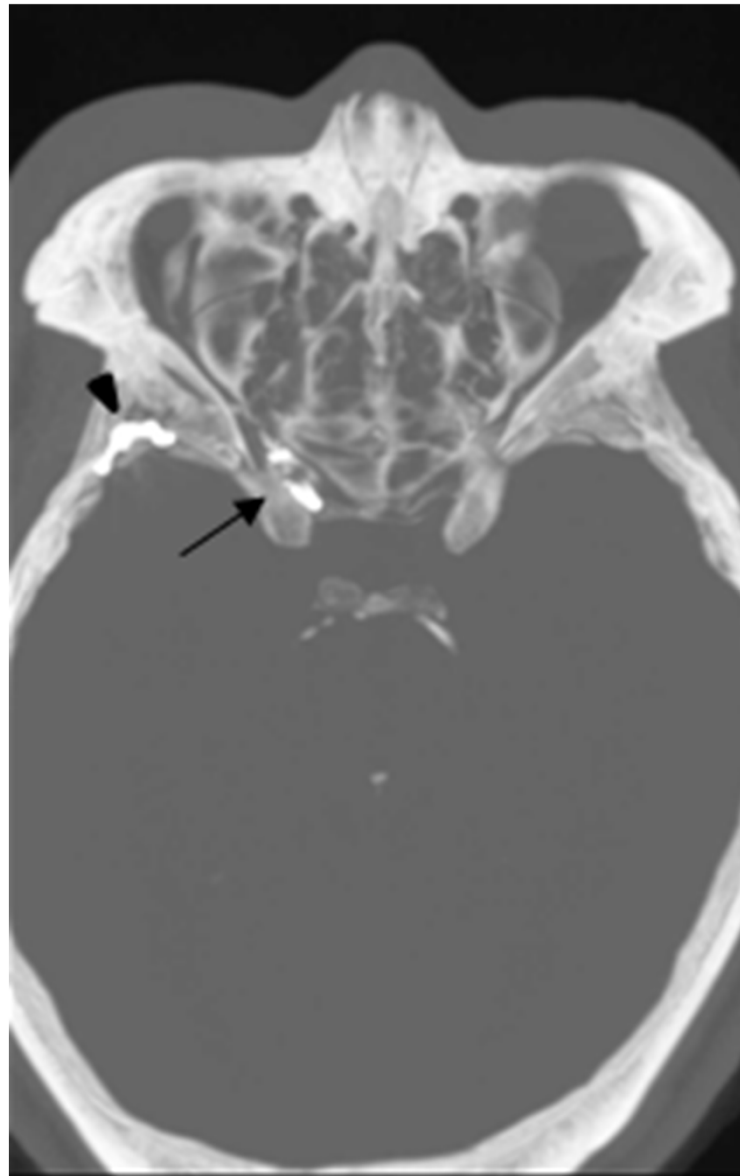


Fig.5