

1)論文種別

症例報告

2) 論文タイトル

on the wall type の SSS DAVF に対し onyx TAE が奏功した一例

3) 全員の著者名

内田賢一^{1,2} 保格宏務² 青柳盟史² 詫磨裕史^{1,2} 古館隆太郎² 廣田暢夫²

4) 著者全員の所属施設・部署（論文が執筆された 所属）

1.千葉脳神経外科病院

2.横須賀市立うわまち病院脳神経外科

5) 連絡著者の氏名・連絡先（所属施設／部署名，住所，電話番号，メールアドレス）

内田賢一

千葉脳神経外科病院

〒263-0001

千葉市稲毛区長沼原町 408

043-250-1228

taizen21@yahoo.co.jp

6) キーワード 5 個以内

on the wall type , SSS DAVF, Onyx TAE

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 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。」

要旨

目的：シャントポイントが sinus 壁に存在するが静脈洞に還流しない Borden type III DAVF を経験し、Onyx TAE にて治癒したことより、これを報告する。症例：不全麻痺、構音障害精査の過程で皮質逆流ある DAVF と診断された。経静脈的にシャントへのアクセス困難より Onyx にてシャントポイント及び venous lacuna を TAE 施行しシャントは消失した。結論：本症例は静脈洞壁から皮質静脈に向かう「on the wall type」SSS-DAVF とされるものである。こうした症例は病態が未解明かつ経静脈的アプローチ困難であり、Onyx TAE が有効と考えられた。

Introduction

Dural Arteriovenous Fistula (DAVF) は静脈洞に発生する sinus type と、直接脳静脈に流入する non sinus type に分けられるとされる¹⁾。前者は静脈洞に流入したのち、ときに逆行性に皮質静脈に還流する。後者の血流は直接脳静脈に還流するため、出血のリスクが高いとされる²⁾。

本症例は静脈洞壁にシャントがある SSS(Superior Sagittal Sinus)-DAVF であるが、sinus へ還流せず皮質静脈側に流出する還流形態となっており、出血性リスクの高い血行動態と考えられる。硬膜動静脈瘻における分類において本症例は Borden type III、Cognard type IV に分類される。こうした還流形態は SSS-DAVF の variant type として報告されており、シャント血流が、言わば静脈洞壁にタッチしただけで皮質静脈に向かう「on the wall type」とされている³⁾。

SSS DAVF に対する治療は近年 multimodality であり、血管内治療においても TAE(Transarterial embolization)、TVE(Transvenous

embolization)など様々な方法がとられているが、還流形態が症例ごとに異なり治療選択に難渋する場合も多い。本症例の報告を行いながら、文献渉猟も踏まえ SSS-DAVF の病態と治療に関する検討を行う。

Case Presentation

63 歳男性で一過性の右不全麻痺、構音障害にて搬送されるも当院搬送時には症状は消失していた。既往歴として未治療の高血圧があり、生活習慣として喫煙を認めた。

MRI

DWI(Diffusion Weighted Imaging)にて急性期脳梗塞は確認されなかったが左内頸動脈狭窄を指摘された。また同検査 FLAIR にて両側性に白質変性も指摘され(Fig1a)、T2 強調画像にて左側半球に皮質静脈の拡張を疑わせる所見を認めた(Fig1b)。

DSA

右外頸動脈の選択的撮影において、右 MMA(Middle Meningeal Artery) anterior branch からの血流は、coronal suture より後方の SSS 左壁でシャントを形成するが、sinus へは還流せず、直接拡張した左側皮質静脈へ逆流した後(Fig1c,d)、左側 T-S(Transverse-Sigmoid)junction へ還流する所見を認めた(Fig1e)。また一部皮質逆流した血流はシャントポイントより前方の SSS へ流入した後(Fig1f)、右 T-S sinus へ還流した(Fig1e)。右 STA(Superior Temporal Artery)からも同一のシャントポイントへの流入を認めた(Fig1-f)。左外頸動脈撮影においては、左 MMA からの血流が、同一部位でシャントを形成した後、sinus を介さず同側皮質静脈への逆流する

所見を認めた(Fig2c)。両側内頸動脈撮影にて大脳半球血流はSSSが還流経路として機能しており、SSSの狭窄、閉塞所見は認めなかった(Fig2d)。3D-DSA MPR(multi-planar reconstruction image)画像によるシャント評価においては、両側MMAからの血流は、SSS壁での集簇とシャントポイントの形成を認めた(Fig2a,b)。

診断

本症例においては左内頸動脈狭窄症にともなう血行力学的なTIA(Transient Ischemic Attack)の可能性とDAVFの皮質逆流による左大脳半球症状の可能性が考えられ、いずれも治療適応ありと判断した。本症例においては外頸動脈経由のTAEも治療選択として必要と判断し、CAS(Carotid Artery Stent)後においては外頸動脈へのガイディングカテーテルの留置に困難きたす可能性あり、DAVFの治療を先行させ後に内頸動脈狭窄症に対しCASを行う方針とした。

治療

3D-DSAの評価よりシャントポイントはSSS壁の同一地点に集簇していると判断し、より遠位までアクセス可能な左MMAからOnyx18(eV3 Neurovascular, Irvine, California, USA)にてTAE行うこととした。

また右MMAからシャントポイントへの血流が多いため、血流によりOnyxが想定外に静脈へ流出しないようコイルにて塞栓行い、血流を減じた後に左MMAからOnyx18を流入させシャントポイントから拡張した静脈腔を塞栓し、皮質静脈直前を塞栓する方針とした。

治療においては、まず右MMAからガイディングカテーテルとして

Fubuki7F(Asahi Intecc,Nagoya,japan)を右外頸動脈に留置した後に Fubuki4.2F(Asahi Intecc,Nagoya,Japan)を顎動脈から MMA 分岐直前に留置した。次にマイクロカテーテルシステムとしてマラソン (Marathon;eV3 Neurovascular,Irvine,CA,USA) と CHIKAI0.010(Asahi Intecc,Nagoya,Japan)を用いてマイクロカテーテルを MMA anterior branch 遠位に留置し ED コイル extrasoft2mm \AA ~8cm(KANEKA Medics,Oosaka,Japan)を2本留置した後に 1.5mm \AA ~3cmを2本留置行い血流を減弱させた。

同様のシステムで左 MMA にアプローチを行い、マラソンにてシャントへアクセスし、Sinus 壁へのシャントポイントへ Onyx18 を用いて塞栓物質を流入させた後、正常還流として機能していない拡張した皮質静脈腔へも

、plug&push を繰り返しシャントポイントと同様に塞栓を行った(Fig3a,b)。この際の Onyx の挙動によりは、静脈洞周囲に Onyx は集簇し、その後に拡張した bridging vein や venous lacunae へ Onyx は浸潤し、皮質静脈へ逆流する血行動態を示した(Fig3c)。塞栓終了後に両側外頸動脈撮影にてシャントの消失が確認し(Fig3d)、同側総頸動脈撮影にて SSS 還流に問題無いことも確認し(Fig3e,f)手技を終了とした。

Discussion

SSS DAVF の特性について SSS-DAVF は DAVF において約 8%を占めるとされており⁴⁾、治療選択は様々であるとされている。

治療選択が一様でない原因として、SSS-DAVF の血行動態が様々であることや SSS が多くの bridging vein を介して、大脳半球からの静脈還流において大きな要素を占めることより、静脈洞温存が必要なことにある。

SSS-DAVF の特性により治療が困難になる理由として、TAE を行う場合においては両側性に多数の **feeding artery** が存在することが多いことが挙げられる。TVE にて治療を行う場合においても **sinus** の閉塞や狭窄が存在し、アクセス自体が困難な場合が存在する。またシャントポイントにおいて、本症例のように **sinus** 壁に流入し、皮質静脈へ逆流している場合などにおいては TVE によるアクセス自体が困難である。

さらにシャントの流出静脈と正常静脈還流が共有されている血流動態においては TAE, TVE いずれの治療もリスクが高いため、TAE もしくは TVE のみの治療では根治出来ない場合もあり複合的な治療が必要な場合も多いとされている⁵⁾。

On the wall type の DAVF について

本症例では主に両側 MMA を **feeder** として静脈洞壁にシャントポイント形成した後、静脈洞に直接還流せず、皮質静脈及び拡張した **venous lacunae** へ流出している。こうした **on the wall type** の DAVF に関する病因は不明であるが、静脈洞閉塞が起こり流出路としての静脈の発達により DAVF が生じた後に静脈洞が再開通した病態が **on the wall type** の DAVF となる可能性も検討されている。しかし、閉塞した静脈洞が再開通した場合、一部狭窄などの残存所見が認められると考えられるが、いずれも静脈洞の開存性に問題を認めず、こうした可能性は低いとしている⁶⁾。

また静脈洞近傍にて静脈血栓症が生じ **on the wall type** の DAVF が生じるとする報告もある⁶⁾一方で、そうした所見は認めないとする報告もある⁷⁾。

on the wall type の DAVF のシャントポイントが静脈洞壁であるか周囲の **bridging vein** へ流入しているかの厳密な評価は画像評価のみでは困難で

あり、正確な評価は開頭などによる直視的評価を必要とすると考えられる。本症例においてシャントポイントは選択的 3D-DSA MPR による造影剤の濃度差が caliber change すなわち動脈から静脈へ移行する口径差により生じることから評価している。こうした所見は右外頸動脈選択 3D-DSA MPR (Fig2a)及び左外頸動脈選択 3D-DSA MPR (Fig2b)いずれにおいても静脈洞壁に集簇していることが、本症例において確認されている。また Onyx TAE における挙動においても静脈洞壁に流入した後に皮質静脈及び venous lacunae へ流出しており(Fig3c)、on the wall type の DAVF と判断している。

またシャントポイントの局在に関する考察として、DAVF のシャントポイントには硬膜内に存在すると病理学的検討の報告がされている^{1,8)}。つまり本来 DAVF のシャントポイントは Fig4*印に示すように sinus, bridging vein, venous lacunae 上のいずれにおいても硬膜内に存在すると考えられる。しかし、on the wall type においては、sinus 壁である硬膜上であり Fig4 矢印にあるように DAVF として異なる病態を示すと考えられる。シャントポイントの局在についても更なる知見の集積が必要である。さらに SSS-DAVF は本来 sinus type に分類されるが、本症例における on the wall type においては前頭蓋底やテントなどに生じる non-sinus type の DAVF 同様に sinus を介さず流出する血流動態を示している。sinus は固有硬膜と骨膜硬膜に囲まれた構造内に存在し、dural vein も同様の部位に存在する。この interdural space における dural artery と dural vein には生理的短絡が存在するとされており¹⁾、本来 sinus type のシャントポイントはこの部位に生じ、その後には様々な流入流出路が生じることが推察される。一方、前頭蓋底やテントは固有硬膜のみ

から成ることより硬膜内には生理的に動静脈短絡せず **bridging vein** などが流出路として機能しやすく **aggressive type** に移行しやすいと考えられる。**on the wall type** の DAVF は静脈洞壁にシャントポイントが存在し流出路として **sinus** は関与しない。こうして直接的に皮質静脈に流出し **non-sinus type** と同様の血流動態を示す類似点を有する。

Onyx TAE について

本症例のようにシャントポイントが **sinus** 壁に存在し、**sinus** を介さず皮質へ逆流するタイプの DAVF は TVE が難しく、シャントポイントが複数ある場合などにおいては NBCA による TAE による治療は **feeder occlusion** となる可能性あり根治が困難である。

こうした病態において Onyx による TAE は多数の **feeder** が存在していても、**plug&push** にて塞栓物質を充填させながら複数のシャントポイントを塞栓することも可能である。

DAVF において TAE より TVE が好まれる場合として、神経栄養血管を含む場合、内頸動脈からの **feeder** の場合、頭蓋内血管と潜在的吻合を持つ外頸動脈を **feeder** とする場合⁹⁾など TAE による合併症が想定される場合が挙げられる。これらにおいてバルーン併用にて血流をコントロールすることにより TAE においても、合併症を避けられる可能性がある。具体的には外頸動脈に留置したガイディングカテーテルからバルーンもしくはバルーン付きカテーテルを **Onyx injection** を行う流入血管ないしその近位側に留置する。また使用するガイディングカテーテルにおいてもバルーン付きを併用すると血流コ

ントロールはより効果的である。これより血流をコントロールして Onyx をシャント及び導出静脈まで十分に浸透させることが可能となり、想定外の導出静脈への Onyx の流出も防ぐことが可能である。

さらに静脈側でバルーンを併用した場合は、機能している sinus へ Onyx が流入することを防ぐことも可能である。

Conclusion

今回我々は SSS-DAVF におけるシャントにおいて sinus の関与しない on the wall type を経験した。SSS-DAVF は還流形態が複雑であり、静脈還流の大きな要素を占めることより治療方針に苦慮する場合も多い。On the wall type は病態として静脈洞、bridging vein, 皮質静脈のいずれにおいても経静脈的にシャントポイントへのアクセスが困難であり、時に multiple shunt である場合も多く TVE による治療は困難である場合が多い。一方経動脈的アプローチは可能な場合も多く、multiple shunt の場合においても Onyx による plug & push にてシャントポイントの閉塞も可能である。本症例においては Onyx TAE により良好な治療結果を得ることができたが、今後とも症例の蓄積検討が必要である。

論文執筆にあたり開示すべき利益相反関係にある企業などはありません。

1)Hori E, Kuwayama N, Harada J, et al: Connection between a dural artery and a dural vein in a dural arteriovenous fistula of the cranial vault. Neurol Med Chir 2007; 47: 26-28.

2)Brown RD Jr, Wiebers DO, Nichols DA, et al: Intracranial dural arteriovenous fistulae angiographic predictors of intracranial

hemorrhage and clinical outcome in non-surgical patients. J Neurosurg 1994;81: 531-538.

3) 伊東久勝,桑山直也,高正圭,他:On the wall type の硬膜動静脈瘻の1例. 脳卒中の外科 2011; 39 卷 6 号: 432-436

4)Cognard C, Gobin YP, Pierot L,et al:Cerebral dural arteriovenous fistulas Clinical and angiographic correlation with a revised classification of venous drainage. Radiology 1995;194:671-80.

5) Jun Watanabe,* Jun Maruya, Keiichi Nishimaki,et al. Onyx removal after embolization of a superior sagittal sinus dural arteriovenous fistula involving scalp artery. Surg Neurol Int 2016; 7(Suppl 14): S410-S414.

6) Bavinzski G, Schoeggl A, Gruber A, et al.Variant arteriovenous fistula of the superior sagittal sinus case report. Neurol Med Chir (Tokyo) 1999;39: 362-366.

7) Barnwell SL, Halbach VV, Dowd CF, et al.A variant of arteriovenous fistulas within the wall of dural sinuses. Results of combined surgical and endovascular therapy. J Neurosurg 1991;74: 199-204.

8) Nishijima M, Takaku A, Endo S, et al. Etiological evaluation of dural arteriovenous malformations of the lateral and sigmoid sinuses based on histopathological examinations. J Neurosurg 1992;76: 600-606.

9) Natarajan SK, Ghodke B, Kim LJ, et al. Multimodality treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas in the onyx era a single center experience. *World Neurosurg.* 2010;73:365–379.

Fig 1

a: Fluid-attenuated inversion recovery magnetic resonance imaging (MRI) showed bilateral white matter degeneration.

b: T2-weighted MRI showed dilated cortical veins in the left cerebral hemispheres (red arrow).

c: The right external (lateral view) carotid angiogram revealed dural arteriovenous fistula on the wall of the superior sagittal sinus (SSS). The fistula was fed by the middle meningeal artery (red arrow), and it drained into the expanded venous lacunae, not into the SSS (red triangle).

d: The right external (AP view) carotid angiogram revealed dural arteriovenous fistula on the wall of the SSS. The fistula was fed by the middle meningeal artery (red arrow), and it drained into the expanded venous lacunae, not into the SSS (red triangle).

e: The right external (AP view) carotid angiography revealed that reflux in the cortical vein flowed into the transverse sigmoid junction on the left side (red triangle). Moreover, it partially flowed into the SSS, from the confluence to the right transverse-sigmoid sinus (red arrow).

f: The right external carotid artery angiography (lateral view) revealed that reflux in the cortical vein (red arrow) flowed into the sinus (red triangle). The vein is located in front of the shunt point.

Fig 2

a: The right external carotid artery 3D-digital subtraction angiography multiplanar reformation (3D-DSA MPR) image showed that the middle meningeal branch formed a shunt point on the sinus wall (red arrow).

b: The right external carotid 3D-DSA angiogram showed that the middle meningeal branch formed a shunt point on the sinus wall and that reflux caused the venous lacunae.

c: The left external carotid 3D-DSA MPR image showed that the middle meningeal branch formed a shunt point on the sinus wall (red arrow).

d: The left selective middle meningeal artery angiography showed that it flowed into the wall of the superior sagittal sinus (SSS). The reflux in the vein flowed into the cortical vein, not into the sinus.

e: The right internal carotid angiography showed that the SSS had a normal flow drainage. No findings, such as stenosis and occlusion, were observed.

Fig 3

a: Onyx was injected from the shunt point of the sinus wall to the expanded venous lacunae (AP view).

b: Transcatheter arterial embolization with Onyx (lateral view).

c: Onyx first gathered around the sinus wall (red circle) and then flowed into the expanded bridging vein and venous lacunae (red arrow). Onyx finally refluxed to the cortical vein (red arrow head).

d: Selective middle meningeal artery angiography showed complete obliteration of the fistula postoperatively (lateral view).

e: Bilateral external carotid artery angiography showed disappearance of DAVF (AP view) after the embolization was completed.

f: The superior sagittal sinus was patent as observed on left common carotid angiography (red arrow).

A similar finding was found on the right common carotid angiography (black arrow).

Fig 4

Diagram for intradural and epidural shunt points.

The shunt point is normally located in the intradural space of the vein in the dilated venous cavity, as indicated by the asterisk.

The shunt point is located on the wall of the superior sagittal sinus, as indicated by the arrow.

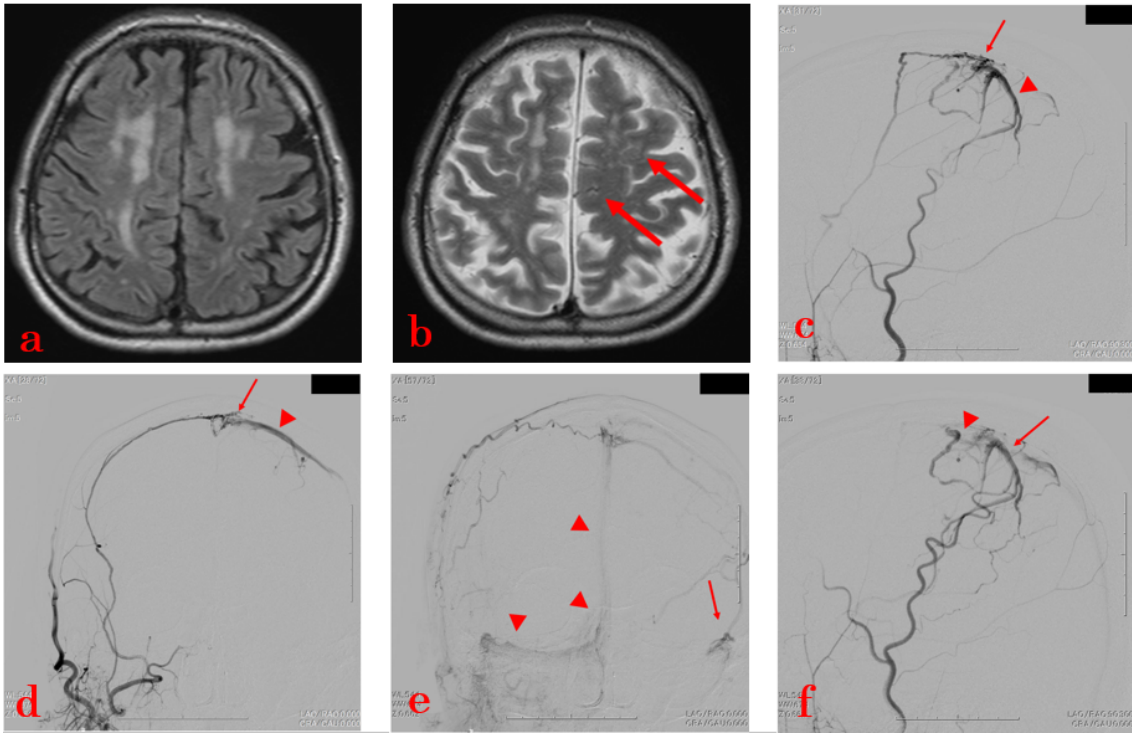


Fig1

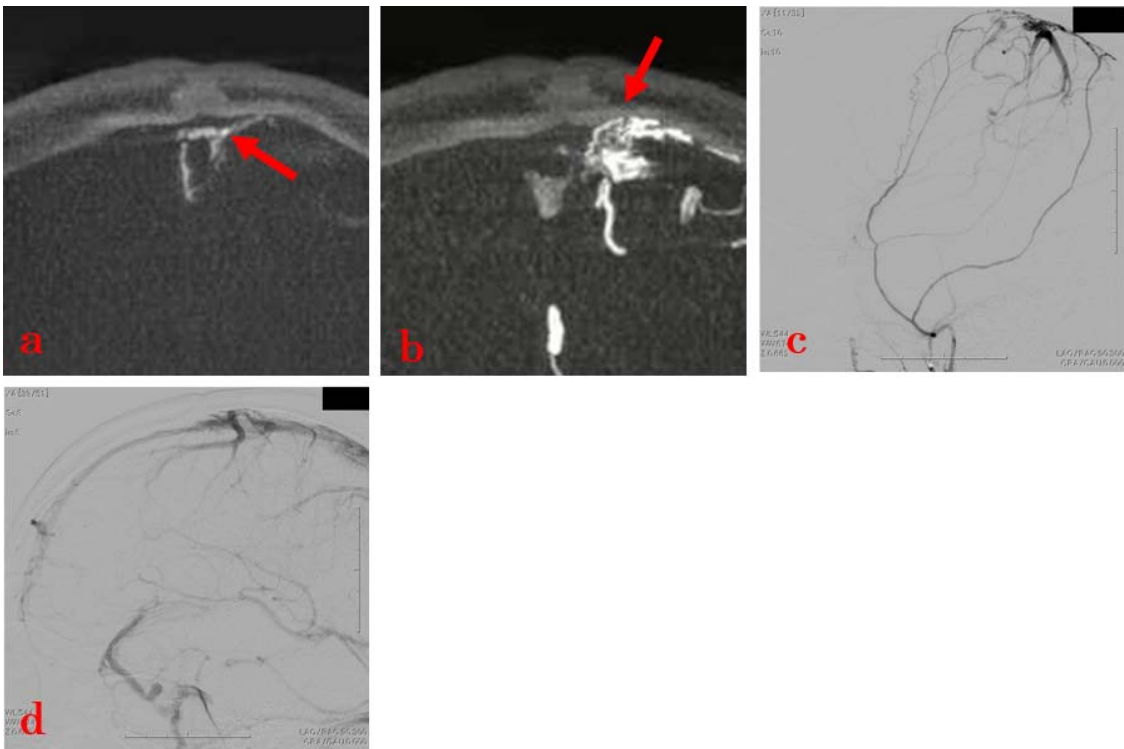


Fig2

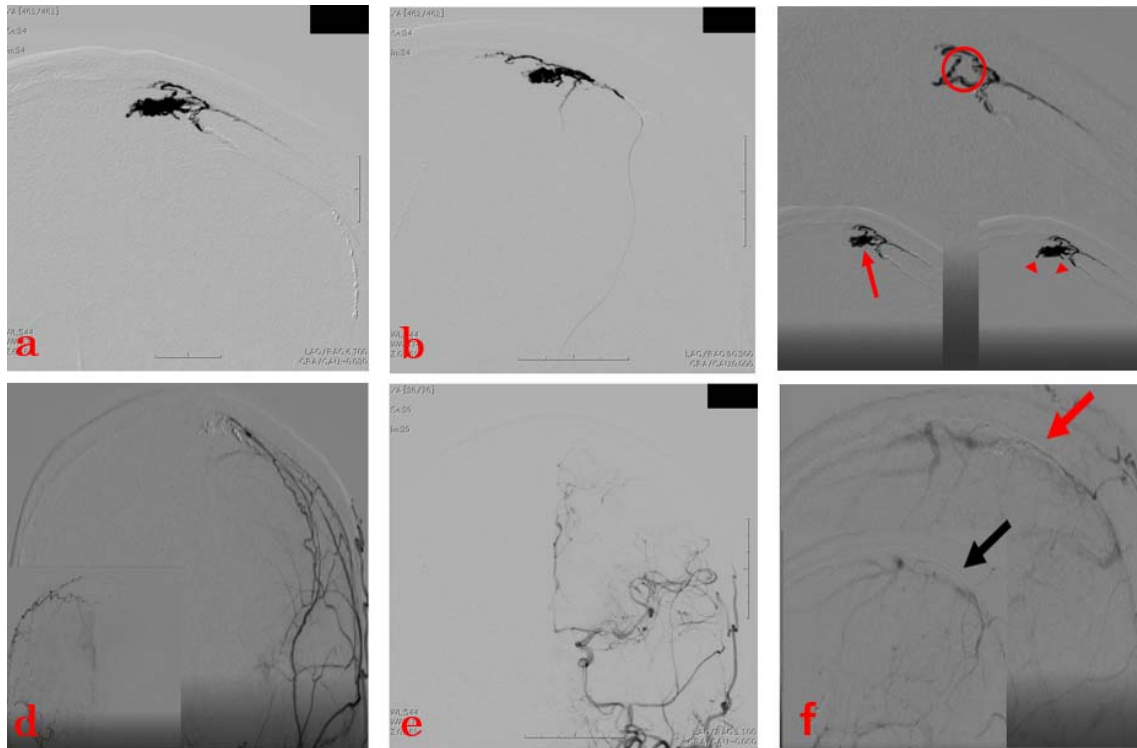


Fig3

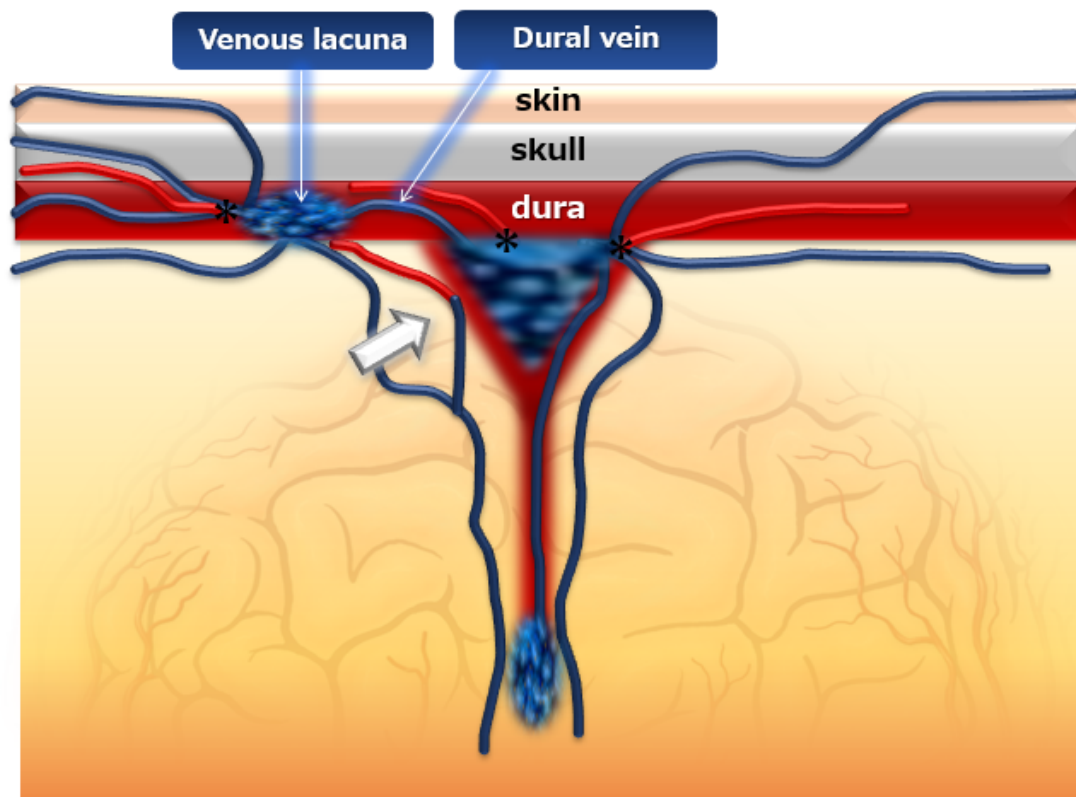


Fig4