

1) 論文種別 症例報告

2) 論文タイトル

近接する骨内にOsseous shuntを形成した“いわゆる”Posterior condylar canal Dural arteriovenous fistulaの1例

3) 著者名

松田謙<sup>1</sup>,山田慎太郎<sup>2</sup>,芝池由規<sup>1</sup>,大岩美都妃<sup>1</sup>,川尻智士<sup>1</sup>,山内貴寛<sup>1</sup>,磯崎誠<sup>1</sup>,常俊顕三<sup>1</sup>,有島英孝<sup>1</sup>,小寺俊昭<sup>1</sup>,菊田健一郎<sup>1</sup>

4) 所属施設

1 福井大学学術研究院医学系部門医学領域脳脊髄神経外科分野

2 中村病院脳神経外科

5)

連絡著者の氏名 松田 謙

連絡先 福井大学学術研究院医学系部門医学領域脳脊髄神経外科分野

住所 〒910-1193 福井県吉田郡永平寺町松岡下合月23-3

電話番号 0776-61-8387

メールアドレス [kenm@u-fukui.ac.jp](mailto:kenm@u-fukui.ac.jp)

6) キーワード

Dural arteriovenous fistula

Posterior condylar canal

Osseous shunt

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。

## 和文要旨

【目的】今回我々は、Posterior condylar canal (PCC)に近接して Osseous shuntを形成した、“いわゆる” Dural arteriovenous fistula (DAVF)を経験したので報告する。【症例】71歳女性。左耳鳴にて頭部MRを施行し、DAVFを示唆する異常血管の集簇を認めた。Conventionalな脳血管撮影の結果、Left PCC DAVFの診断に至った。この症例に対してTransvenous embolizationを施行した。術中の3D-RAおよびその再構成横断像により、本症例はPCCに近接する骨内にOsseous shuntを形成していることが判明した。治療により Shuntは完全閉塞し、左耳鳴は消失した。【結論】PCC DAVFは、過去の文献を渉猟した限り3例の報告があるのみで、非常に稀な疾患といえる。また過去に明確にShunt pointについて言及した報告はなく、病態把握と治療には、術中の3D-RAおよびその再構成横断像が非常に有用であった。

## 本文

はじめに(Introduction)

Anterior condylar confluence (ACC) Dural arteriovenous fistula (DAVF)をはじめ、その近傍の DAVF は近年注目されている領域である。今回我々は、Posterior condylar canal (PCC)に近接する骨内に Osseous shunt を形成し Posterior condylar vein (PCV)に流出する、“いわゆる” DAVF に対して Transvenous embolization (TVE)を行った。過去に同様の報告は少なく、文献的考察を含めて報告する。

症例提示 (Case report)

症例：71歳、女性。

既往歴：高血圧、高脂血症、甲状腺腫瘍。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：1か月前より左耳鳴が出現したため、近医耳鼻科を受診した。頭部MRを施行したところ、DAVFを示唆する異常血管の集簇を認めたため、当科紹介となった。

現症：左耳鳴（拍動性）以外明らかな異常を認めなかった。

画像検査：Conventionalな血管撮影上、Feederは、Bil. Ascending pharyngeal artery (APA)、Left occipital artery (OA)、Bil. anterior meningeal artery (AMA)、Left deep cervical artery、Bil. dorsal meningeal artery (DMA)、Left vertebral artery (VA)のmuscular branchで、Left PCVに流入して、Suboccipital cavernous sinus (SCS)、Sigmoid sinus (SS)からInternal jugular vein (IJV)へと心臓側に流出するほか、Inferior petrosal sinus (IPS)へと逆流していた (Fig.1)。以上の結果より、PCC DAVFの診断に至った。ちなみに、Left APAはOAと共通幹を形成して分岐していた。それぞれの血管を選択的に撮影すると、Left APAからのfeederはPCVに流入してSSへと抜け、IJVに流出しており、Left OAからのFeederはPCVに流入した後、頭蓋外にでてそのまま心臓側へ流出していく以外に、SCS、Marginal sinus (MS)、およびAnterior condylar vein (ACV)を経由して、IJVへと流出するほかIPSに逆流していた。Left VAからのFeederはPCVに流入した後、SS側と頭蓋外PCV側の両方向に流出がみられたが、Shunt

flowのほとんどは頭蓋外PCV側へと流入、OAからのShunt flowと同様に、SCS、MS、およびACVを経由してIJVへ流出、IPSにも逆流していた。

治療：局所麻酔下に、TVEを施行した。Right femoral arteryに4F long sheath、Left femoral arteryに5F Fubuki guiding sheath 80cm（朝日インテック,愛知,日本）を挿入した。ほか、Right femoral veinにも5F Fubuki guiding sheath 90cmを挿入した。全身へパリン化を行い、ACTをControlの2.0~2.5となるよう維持しながら、以下の手技を行った。Left femoral arteryから挿入した5F FubukiをLeft common carotid artery (CCA)へと誘導した。このGuiding sheathにXT-27 (Stryker, Kalamazoo, Michigan, USA)を進めて、CHIKAI 0.014 (朝日インテック,愛知,日本)を用いてLeft APAを選択した。ほかに、4F JB-1 catheterを血管撮影用としてRight CCAへ留置した。Roadmap下に、4F JB-1 catheter+5F FubukiのCoaxial systemを、Silverway (朝日インテック,愛知,日本)を用いてLeft IJVへと誘導した。はじめに、Echelon 14 pre-shaped 45 (Medtronic, Minneapolis, Minnesota, USA)を、Synchro2 (Stryker, Kalamazoo, Michigan, USA)を用いて、両側のAPAからの選択撮影を適宜用いて、Left IJVからSSに入りPCVへと進んだ。3D-RAおよびその再構成横断像の情報を参考に(Fig. 2)、Shuntが集簇してくるPointをCoilで閉塞させた。

CoilはTarget 360 NANO (Stryker, Kalamazoo, Michigan, USA)およびSMART COIL WAVE EXTRA (Penumbra, Alameda, California, USA日本)の1mm径を用いた。血管撮影で、両側のAPAからのShunt量

が着実に減少していることを確認した。そのままPCVを閉塞させてしまってもよかったが、この時点ではまだ我々はShunt pointを完全に把握できていなかった。このため、4F JB-1 catheterをLeft VAの起始部へと誘導し、Left VAGおよび3D-rotational angiography (RA)を施行した(Fig. 3)。特に3D-RAを施行する際には、Shunt pointと静脈の構造が理解しやすいように、IJVからPCC内PCVを越えて頭蓋外PCVにEchelon 14 pre-shaped 45を置き、もう1本はIJVからACV、MSあたりまでカテ先を進めた。その先は抵抗を認めたため、Microguidewireのみ頭蓋外PCVまで到達させておいた。先に施行したLeft OA(APAとの共通幹)の3D-RAおよびその再構成横断像の所見(Fig. 2)も合わせると、Shuntの分布は、主にPCVよりも内側のFeederが集簇するものと、外側のFeederが集簇するもので2つの支流に分かれており、いずれもPCVより内側でOsseous shuntを形成、前後方向に非常に近接して存在し、それぞれ別のところからPCVへと流出していた(Fig. 2, 3)。PCVそのものを閉塞させれば、Shuntが消失する確証が得られたので、PCVの処置に移ることにした。詰め残しがあった場合に備えてEchelon 14 pre-shaped 45を、PCC内PCVを越えて頭蓋外PCVに進めて留置しておき、もう1本のMicrocatheterをControlしながら、PCVを頭蓋外への入口部からSS側に向かってCoilで詰め戻った(Fig. 4)。CoilはTarget XL 360 SOFT (Stryker, Kalamazoo, Michigan, USA) 3mm径、SMART COIL EXTRA SOFT (Penumbra, Alameda, California, USA) 2mm径、Barricade Coil Complex Finish (Balt USA, Irvine, California,

USA) 2mm径を用いた。血管撮影にてShuntの閉塞を確認して手技を終了した (Fig. 5)。

経過:治療後ただちに主訴である左耳鳴 (拍動性) は消失した。経過良好で、術後第7日目に自宅退院となった。

#### 考察 (Discussion)

PCCは頭蓋内で大きな導出路であり、過去のCTによる検討では少なくとも81%は片側で確認できる構造である (両側性31%、片側性50%)<sup>1)</sup>。この中をPCVが走行する。PCVは、JB、もしくはSSの最内側部から始まり、PCCを抜けてSCSやParavertebral veinへとかん流する<sup>2,3)</sup>。

Anterior condylar confluence (ACC) Dural arteriovenous fistula (DAVF)をはじめ、その近傍のDAVFは近年注目されている領域である。今回報告したPCCにShuntが集簇するDAVFは、我々が渉猟した限り、2007年に清末ら<sup>1)</sup>が初めて報告して以降計3例しか報告されておらず、非常に稀な疾患である<sup>4,5,6)</sup> (Table 1)。疾患の特徴として、耳鳴 (拍動性) の症状で発症することが多く<sup>4,5,6)</sup>、FeederはAPA、OA、AMA、Posterior meningeal artery (PMA)、DMA、VAなどで、Shuntに集簇してPCVからSSやSCSへとDrainingする。ほかにMondelら<sup>7)</sup>とShambanduramら<sup>8)</sup>が報告したPCC DAVFとされる症例はいずれも出血発症 (くも膜下出血) となっているが、これはBridging veinを介して頭蓋内にDrainingしていたためで、過去のPCC DAVFの症例と趣を異にする。Feeder自体も、PCVに流入はせず頭蓋内のBridging veinにShuntを形成しているようであり、過去の3例や本症例のように

Osseous shunt を形成し PCV に流入する AVF ではないため、異なる Entity と判断した。

報告された PCC DAVF の症例で、Shunt point について明確に記載されたものはない。佐々木ら<sup>5)</sup>は唯一次の考察をおこなっている。① Jugular foramen (JF) は硬膜で覆われていることから、Juglar bulb (JB) から PCC に入るまでの部分も硬膜に覆われている。② JF の内面には骨膜や脳神経周囲の密な結合織が存在し、PCC の内面も同様に骨膜で覆われている。③ 硬膜と骨膜は解剖学的に類似する。以上の 3 点より PCC を含む ACC 近傍の DAVF の発生には硬膜と骨膜の両者が関与している可能性があるとしている。しかしながら、PCC の内面に骨膜がどの程度覆われているかについては正確な報告はなく、また本症例のように PCC ではなく近接した骨内に Shunt が形成されることに関しての十分な説明にはならないと考えられた。

一方、近年水谷ら<sup>9)</sup>は Jugular tubercle (JT) 内の骨内静脈構造についての詳細な検討を行っている。CT-Digital subtraction venography を用いて評価をおこなったところ、Normal control の 46% に、Hypoglossal canal の上内側の JT 内に骨内静脈が確認された。これは ACV につながる構造で、それ以外の近接する静脈構造にも接続していた。彼らは、この構造を Jugular tubercle venous complex (JTVC) と命名しており、PCV には 39% 接続があった。また自験例の 7 症例の ACC Dural AVF で 9 箇所 of Fistulous pouch が確認され、JTVC、ACV、その他の骨内に 33.3% ずつ存在していたと報告している。Osseous layer 内の Venous channel と Dural layer のそれとは、発生学的には同じで Meninx primitiva を基にしてい

る。その後、Meninx primitivaはいくつかの層に分化して、Outermost dense skeletogenous layerから骨が発達し、Inner layerから硬膜が形成される<sup>10,11,12)</sup>。このことより水谷ら<sup>13)</sup>は、Osseous veinにも発生学的に生理的なAV shuntが存在し、頭蓋内のDAVFによく似た発生機序でAVFが発達してくると推論している。

本症例は、術中に施行した3D-RAおよびその再構成横断像で評価したところ、PCVの内側に隣接する骨内に2箇所 Osseous shuntが確認でき、PCVへと流出していた。このことより通常のDAVFとは違って、厳密にはPCCに近接する骨内にShunt pointが存在しているものと判断された。Osseous shunt自体はJTより背側でPCCの内側の骨内に認められたものの、AVFの発生には水谷ら<sup>13)</sup>の推論の如く、Osseous veinにも発生学的に生理的なAV shuntが存在し、頭蓋内のDAVFによく似た発生機序でAVFが発達してきたものと考えられた。

治療はEndovascular surgery、Microsurgery、Radiosurgeryの3法が考慮される。Microsurgeryは解剖学的に困難なうえ、出血や下位脳神経の損傷のリスクを伴う。Radiosurgeryは効果がでるまでに時間を要することや、こちらも下位脳神経の損傷のリスクがある。故にEndovascular surgeryが第1選択になると考えるが、到達が可能であればやはり経静脈的に塞栓術を施行するほうが安全である。文献上はN-butyl-2 cyanoacrylate (NBCA)によるTransarterial embolization (TAE)がこの部位近傍で2例報告され

ているが<sup>7,8)</sup>、いずれも Drainer が Bridging vein で経静脈的に Approach が困難であった症例である。

NBCA や ONYX といった Liquid agent による TAE は、目的とする Shunt 以外への迷入や、神経栄養枝の閉塞による神経障害のリスクがあることを常に留意するべきである。

#### 結語 (Conclusion)

PCC に近接する骨内に Osseous shunt を形成し PCV に流出する、

“いわゆる” PCC DAVF に対して TVE で治療を行った。

Conventional な脳血管撮影では AVF の病態把握は困難で、術中に施行した 3D-RA およびその再構成横断像によって正確な評価を行うことが可能であった。

#### 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) Ginsberg LE: The posterior condylar canal. AJNR Am J Neuroradiol 1994; 15: 969-72.

2) San Millán Ruíz D, Gailloud P, Rüfenacht DA, et al.: The craniocervical venous system in relation to cerebral venous drainage. AJNR Am J Neuroradiol 2002; 23: 1500-08.

3) Takahashi S, Sakuma I, Omachi K, et al.: Craniocervical junction venous anatomy around the suboccipital cavernous

sinus: evaluation by MR imaging. Eur Radiol 2005; 15: 1694-700.

4) Kiyosue H, Okahara M, Sagara Y, et al: Dural arteriovenous fistula involving the posterior condylar canal. AJNR Am J Neuroradiol 2007; 28: 1599-601.

5) Sasaki T, Nagashima H, Satoh D, et al.: Dural arteriovenous fistula around the anterior condylar confluent: Report of two cases. JNET 2008; 2: 212-216. (in Japanese)

6) Maus V, Söderman M, Rodesch G, et al.: Endovascular treatment of posterior condylar canal dural arteriovenous fistula. BMJ Case Rep 2016. doi:10.1136/bcr-2016-012384.

7) Mondel PK, Saraf R, Limaye US: Acute subarachnoid hemorrhage in posterior condylar canal dural arteriovenous fistula: imaging features with endovascular management. BMJ Case Rep 2014. doi: 10.1136/bcr-2014-011273.

8) Shambanduram SS, Devarajan Sebastian LJ, Jain N, et al.: Management of a rare case of posterior condylar canal dural arteriovenous fistula presenting with subarachnoid haemorrhage: A case report and review of literature. Interv Neuroradiol 2018; 24: 206-209.

9) Mizutani K, Akiyama T, Minami Y, et al.: Intraosseous venous structures adjacent to the jugular tubercle

associated with an anterior condylar dural arteriovenous fistula. *Neuroradiology* 2018; 60: 487-496.

10) O' Rahilly R, Müller F: The meninges in human development. *J Neuropathol Exp Neurol* 1986; 45: 588-608.

11) Kamiryo T, Orita T, Nishizaki T, et al.: Development of the rat meninx: experimental study using bromodeoxyuridine. *Anat Rec* 1990; 227: 207-210.

12) Jin SW, Sim KB, Kim SD: Development and Growth of the Normal Cranial Vault: An Embryologic Review. *J Korean Neurosurg Soc* 2016; 59: 192-196.

13) Mizutani K, Akiyama T, Yoshida K. The Anterior Condylar Arteriovenous Fistula from the Viewpoint of the Osseous Venous Anatomy. *JNET* 2019; 13: 97-104.

Fig. 1 (A) Anteroposterior view on angiography of the left common trunk of the APA and the OA.

(B, C) Lateral view on angiography of the left common trunk of the APA and the OA. Many feeders from the APA and OA aggregated around the PCV. The fistulous flow drained through the PCV in two directions, the SS and the SCS. The fistulous flow reached the SCS, draining into both the DCV and the IJV via the MS and the ACV. Reflux into the IPS was confirmed.

(D) Lateral view on angiography of the left APA. The fistula flow from the APA drained into the SS and the IJV.

(E) Lateral view on angiography of the left OA. The fistula flow mainly reached the SCS from the OA draining into the IJV via the MS and ACV. Reflux into the IPS was confirmed.

(F) Lateral view on angiography of the left VA. Many feeders from the VA aggregated around the PCV. The fistula flow drained through the PCV in two directions, the SS and the SCS. The amount of drainage to the SCS was greater than that of the SS. The fistulous flow from the SCS drained into both the DCV and the IJV via the MS and ACV. Reflux into the IPS was confirmed.

ACV: anterior condylar vein; AIVVP: anterior internal vertebral venous plexus; APA: ascending pharyngeal artery; DCV: deep cervical vein; IJV: internal jugular vein; IPS: inferior petrosal sinus; MS: marginal sinus; OA: occipital artery; PCV: posterior condylar vein; SCS: suboccipital cavernous sinus; SS: sigmoid sinus; VA: vertebral artery

Fig. 2 (A) 3D-RA via the left common trunk of the APA and the OA. The figure shows the rear upper view from the medial side.

(B) Illustration of 3D-RA via the left common trunk of the APA and the OA.

(C-H) Axially reconstructed image of 3D-RA via the left common trunk of the APA and the OA. Two fistula pouches (white arrow and white arrowhead) were located in the occipital bone medial

to the PCC. One fistula pouch (white arrow) mainly received flow from the AV shunt from the medial feeders, whereas the other (white arrowhead) mainly received flow from the lateral feeders.

ACV: anterior condylar vein; AIVVP: anterior internal vertebral venous plexus; APA: ascending pharyngeal artery; AV: arteriovenous; DCV: deep cervical vein; IJV: internal jugular vein; IPS: inferior petrosal sinus; MS: marginal sinus; OA: occipital artery; PCC: posterior condylar canal; PCV: posterior condylar vein; RA: rotational angiography; SCS: suboccipital cavernous sinus; SS: sigmoid sinus

Fig. 3 (A) 3D-RA via the left VA. The figure shows the rear upper view from the medial side. (B) Illustration of 3D-RA via the left VA.

(C-H) Axially reconstructed image of 3D-RA via the left VA. The fistula pouch (white arrowhead) was located in the occipital bone medial to the PCC and shared a common trunk with the feeders from the OA. One microsystem (microcatheter and microguidewire) was located in the SCS via the PCV. Another was located in the same area via the ACV and MS.

ACV: anterior condylar vein; AIVVP: anterior internal vertebral

venous plexus; DCV: deep cervical vein; IJV: internal jugular vein; IPS: inferior petrosal sinus; MS: marginal sinus; OA: occipital artery; PCC: posterior condylar canal; PCV: posterior condylar vein; RA: rotational angiography; SS: sigmoid sinus; SCS: suboccipital cavernous sinus; VA: vertebral artery

Fig. 4 Lateral view. (A) The microcatheter was located in the PCV. Another was located in the SCS via the PCV. The coil mass represents the fistula pouch that received flow from the AV shunt from the medial feeders (white arrow).

(B) Lateral view on angiography of the VA.

(C) The PCV was occluded with coils.

Fig. 5 (A, B) Lateral view on angiography of the left CCA and VA. The AV shunt and patient's symptom disappeared after occluding the PCV from the osseous shunt.

(C) Postoperative CT showed the coil mass located in the PCC.

Table 1

Summary of PCC DAVF

APA: Ascending pharyngeal artery, AMA: Anterior meningeal artery, OA: Occipital artery, DMA: Dorsal meningeal artery,

VA: Vertebral artery, ECA: External carotid artery, SS:  
Sigmoid sinus, OS: Occipital sinus, SCS: Suboccipital  
cavernous sinus, IJV: Internal jugular vein, IPS: Inferior  
petrosal sinus, CS: Cavernous sinus, TVE: Transvenous  
embolization

Case	Symptom	Feeding artery	Draining vein	Treatment/Result
1. 54 years, M Kiyosue H et al. 2007	Tinnitus	APA AMA OA DMA	SS Paravertebral veins OS	TVE/cured
2. 26 years, M Sasaki T et al. 2008	Tinnitus	APA OA	SCS SS and IJV	TVE/cured
3. age unknown, F Maus V et al. 2016	Tinnitus	APA VA ECA (other branches)	SCS SS and IJV	TVE/cured
4. 71 years, F Present case	Tinnitus	APA AMA Muscular branch of VA OA DMA	SS and IJV SCS (IPS→CS)	TVE/cured

Fig. 1

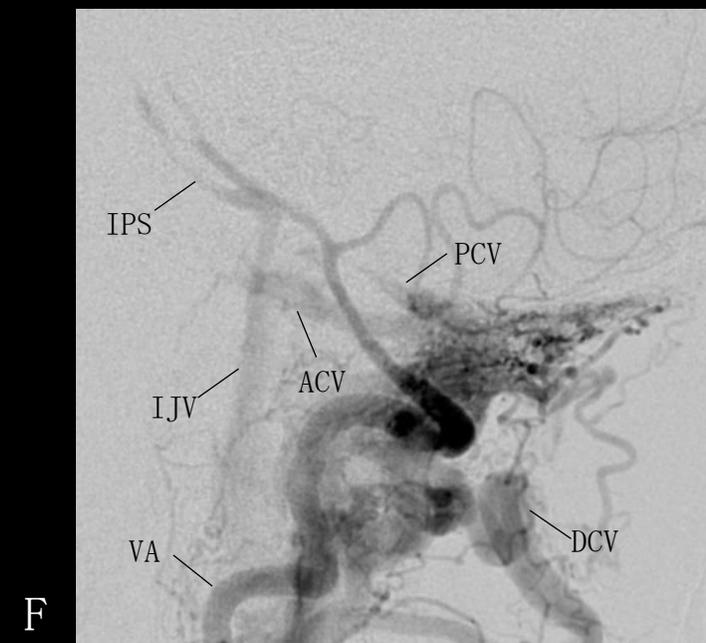
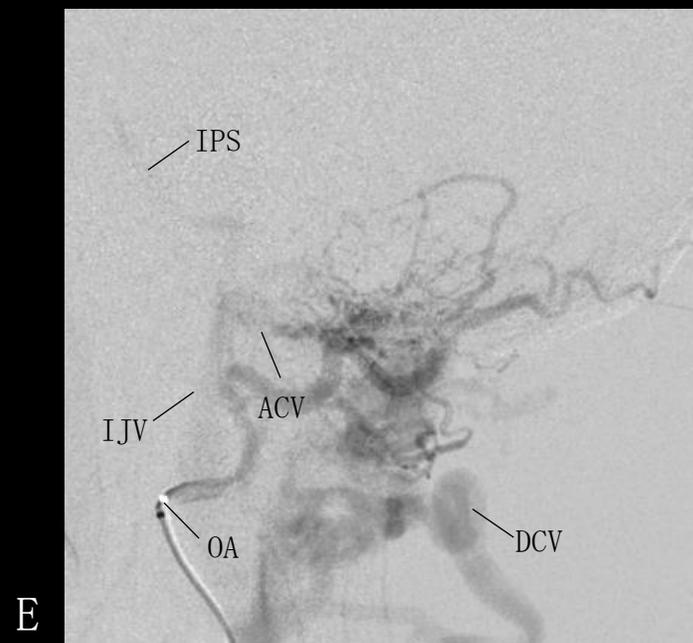
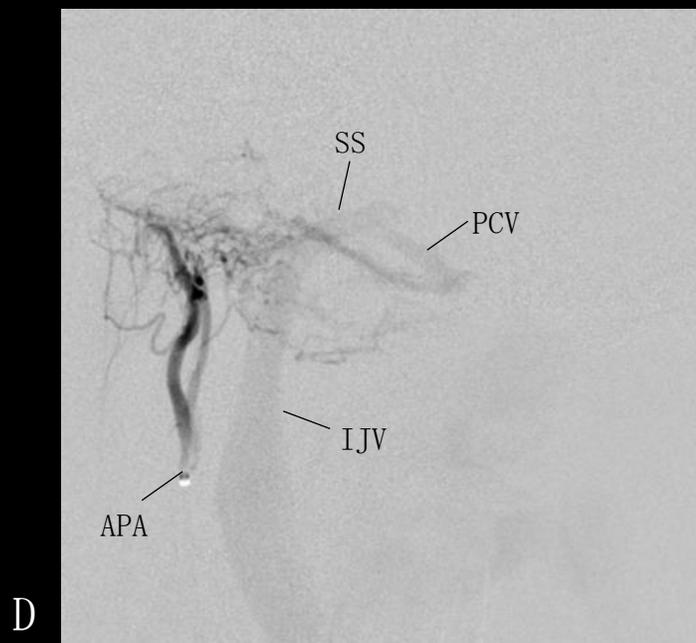
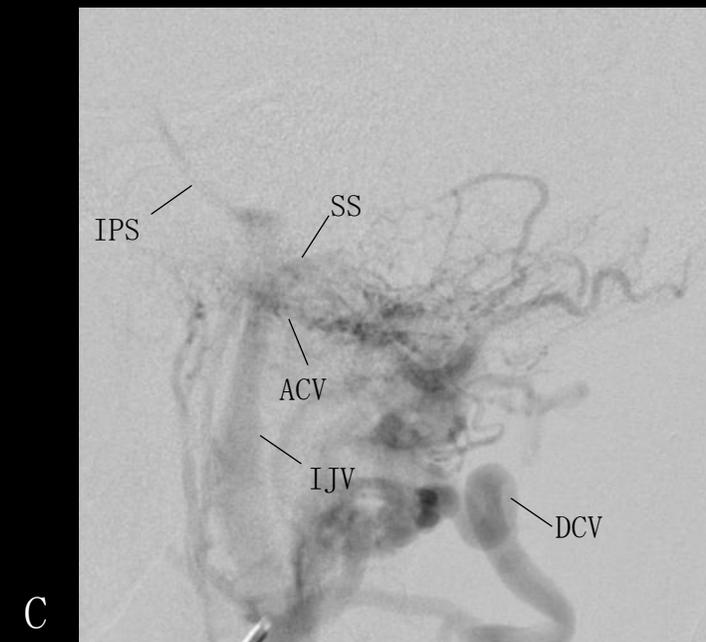
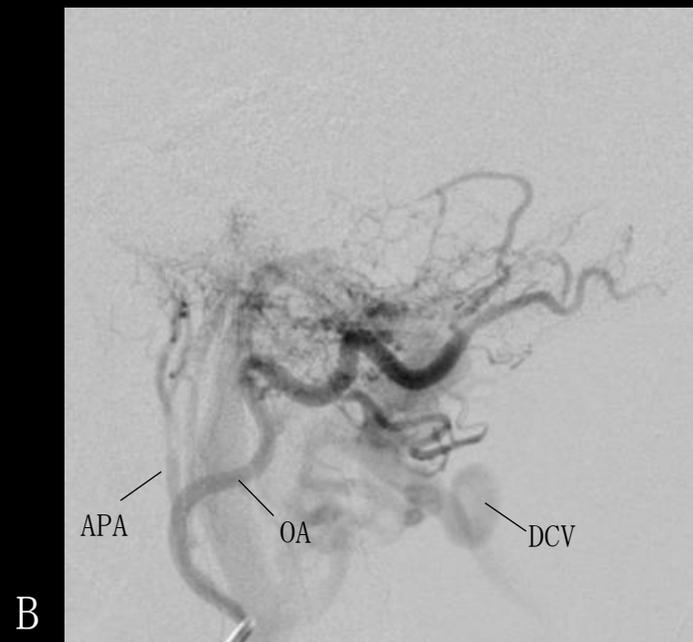
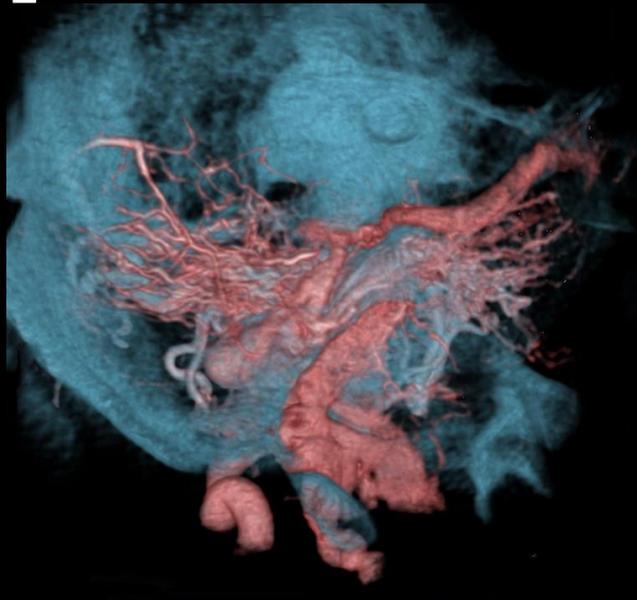
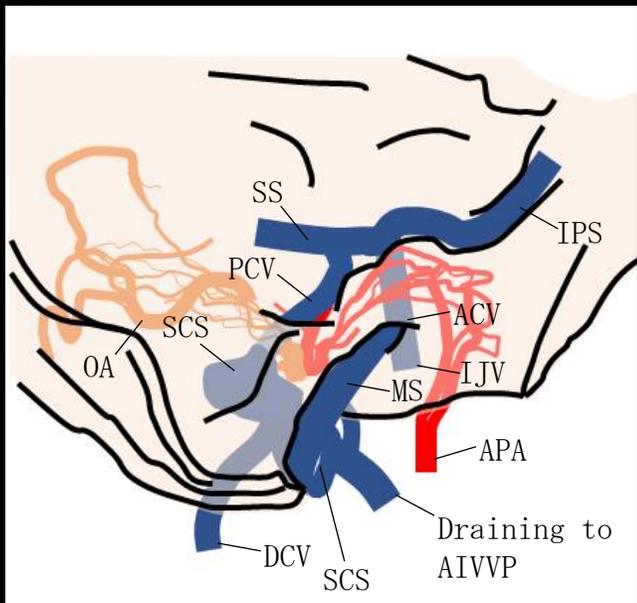


Fig. 2



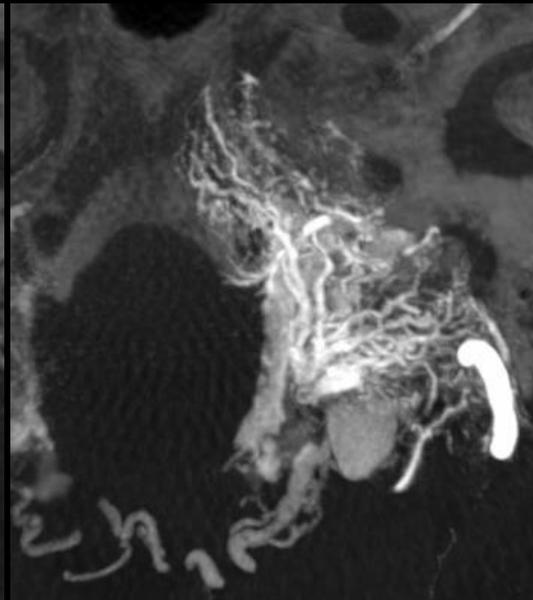
A



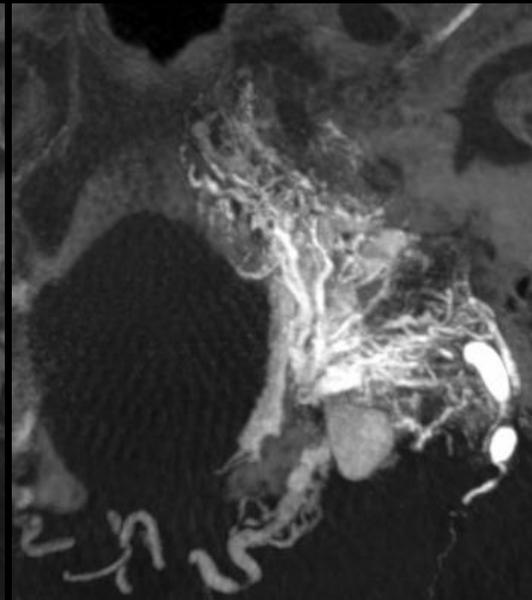
B



C



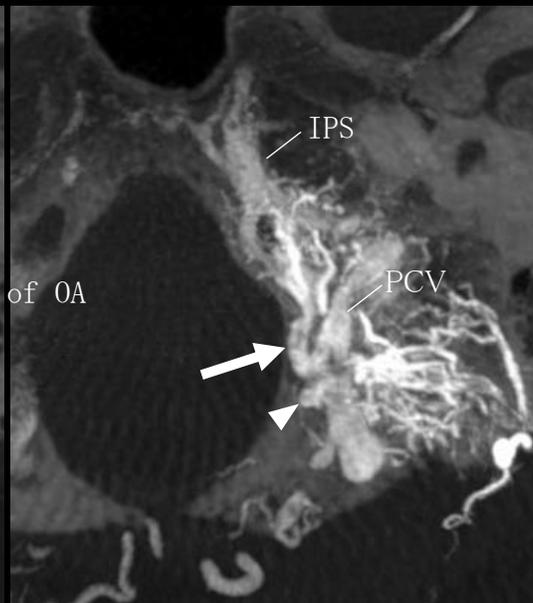
D



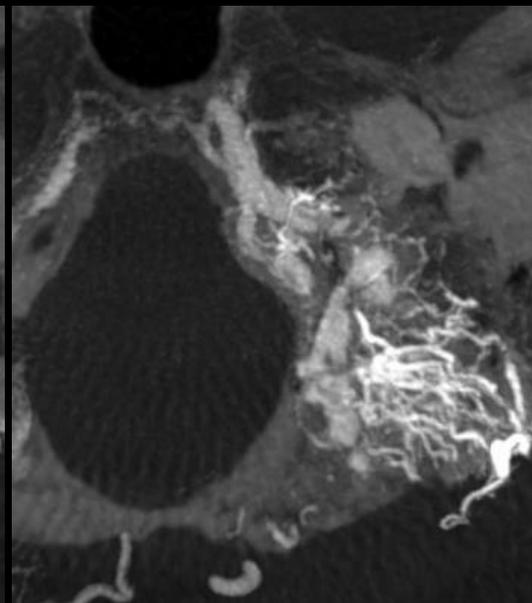
E



F

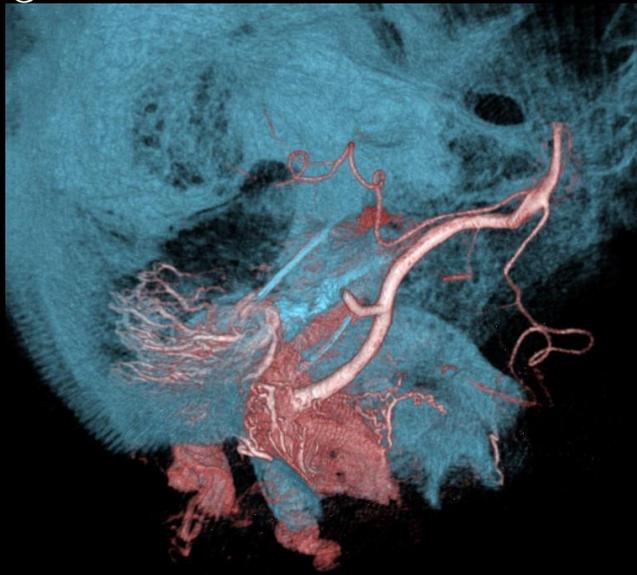


G

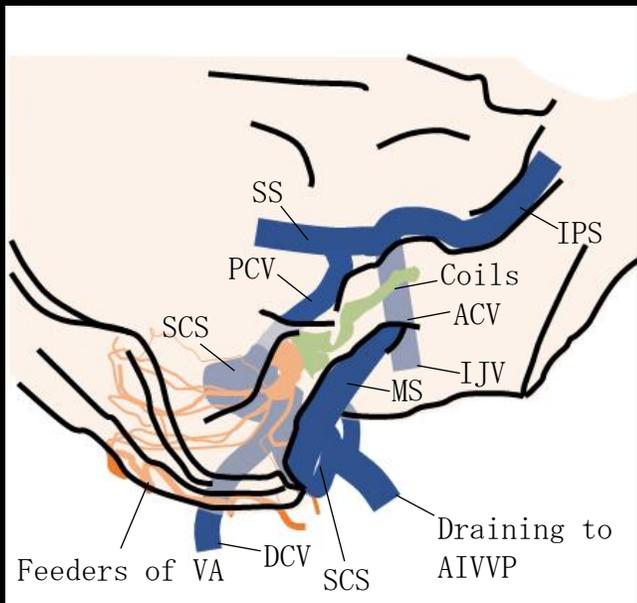


H

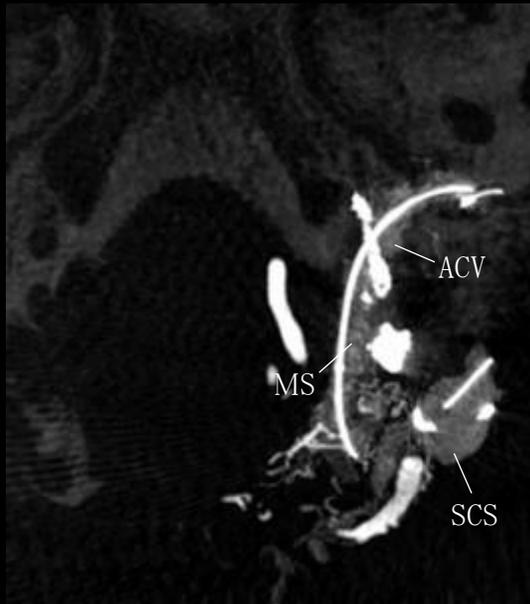
Fig. 3



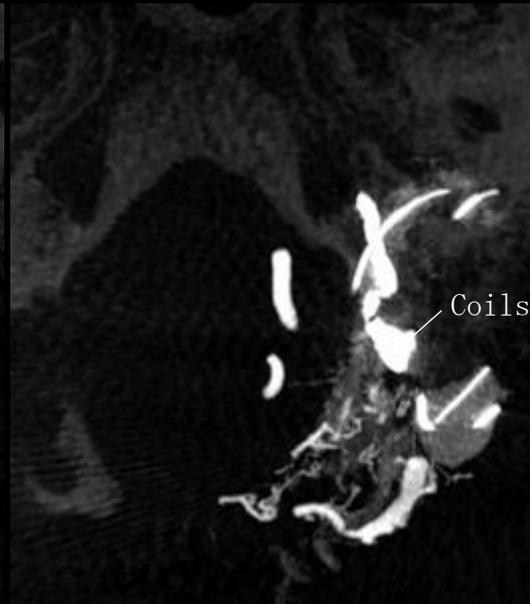
A



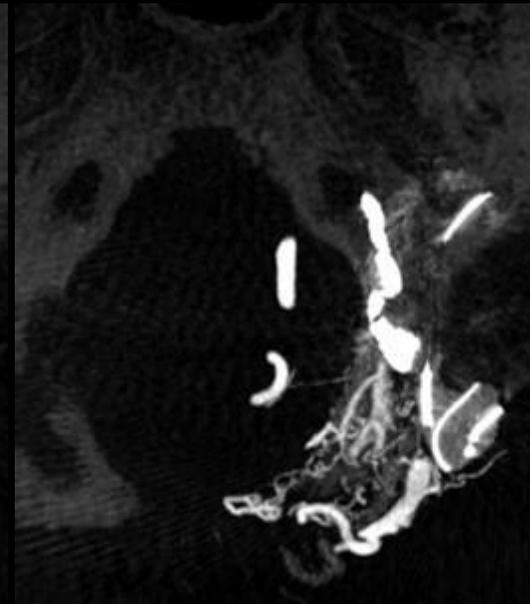
B



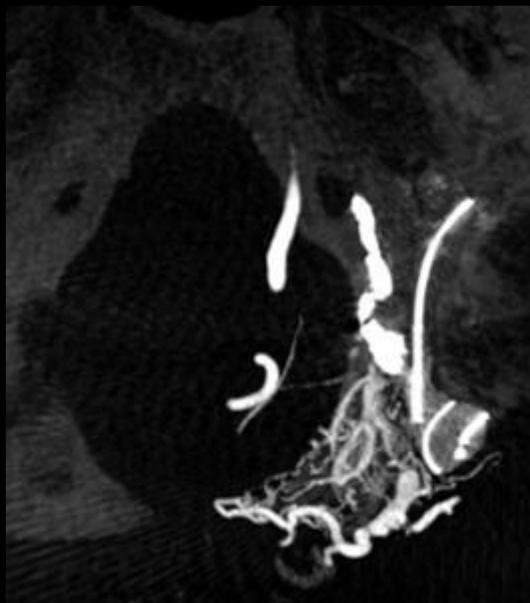
C



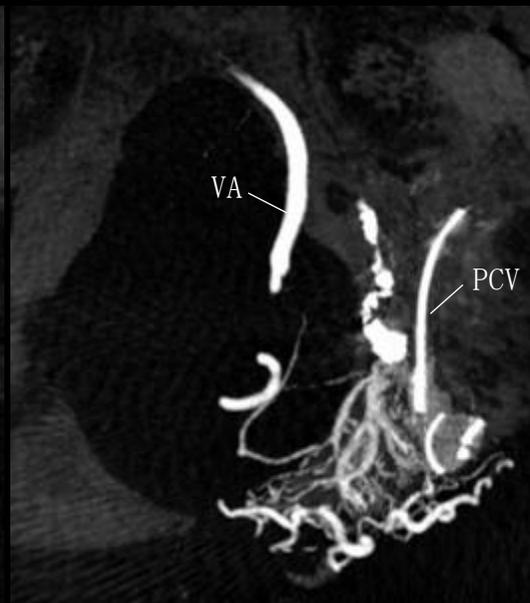
D



E



F

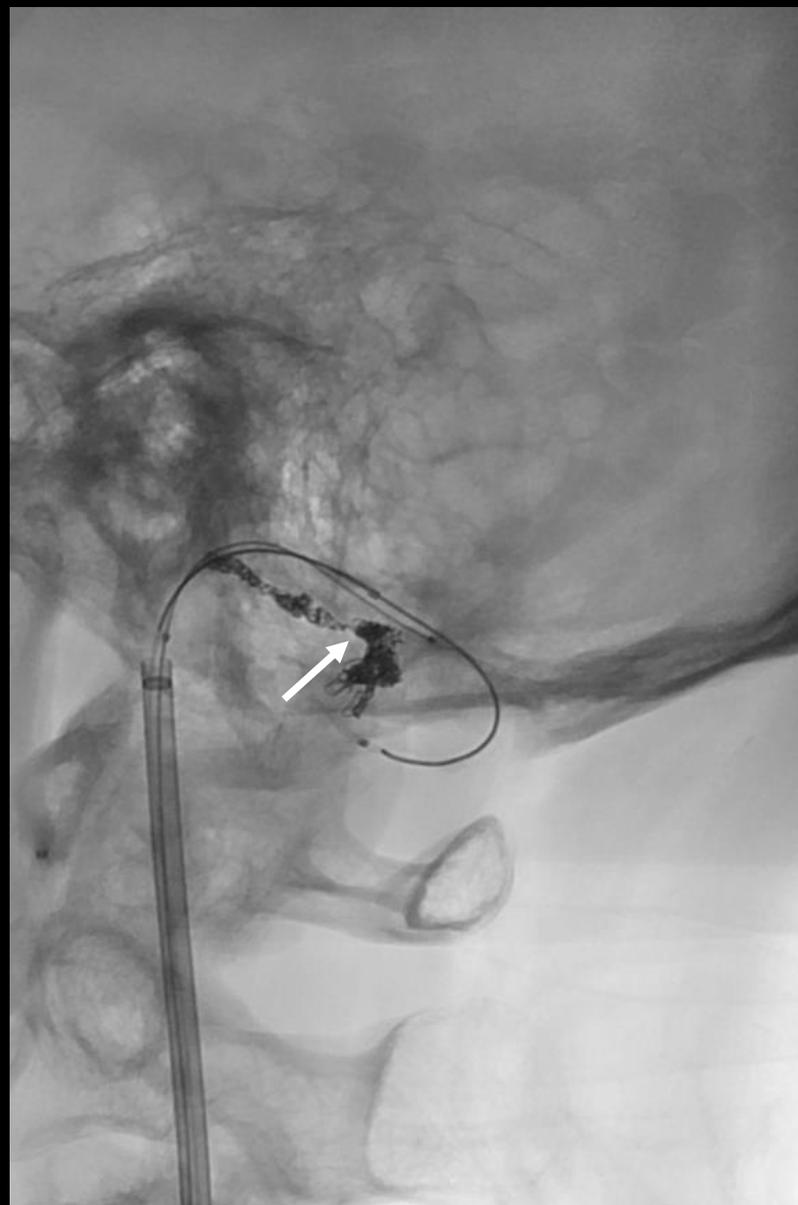


G



H

Fig. 4

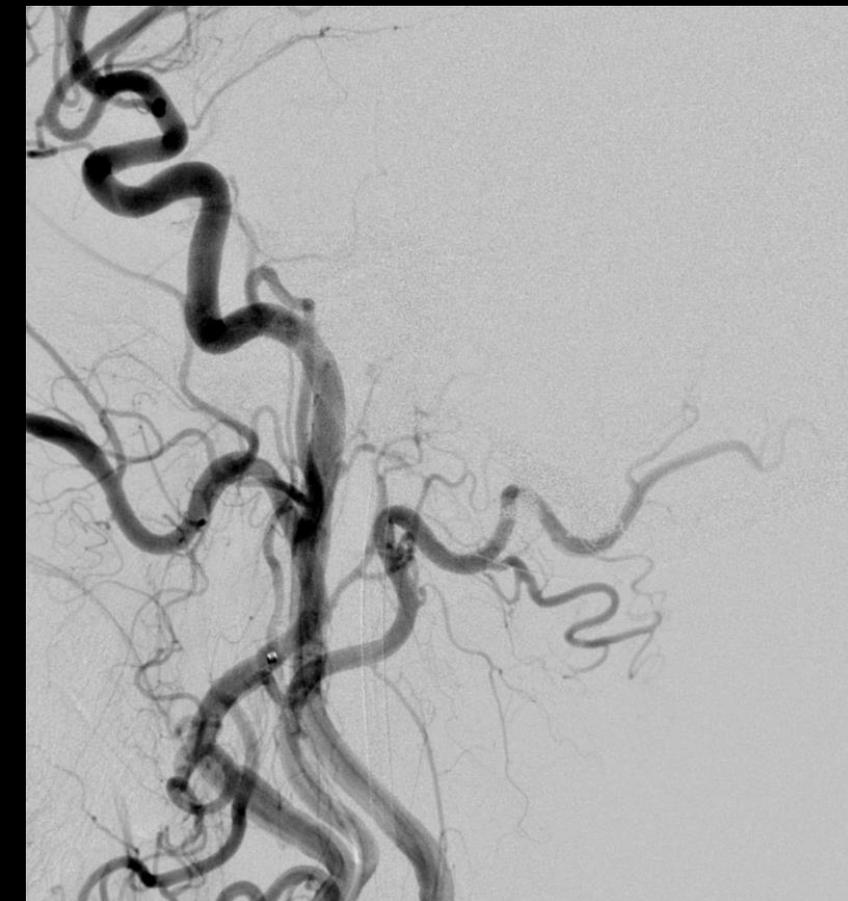


A

B

C

Fig. 5



A



B



C