

【論文掲載形式】

テクニカルノート

Technical note

【論文タイトル】

経静脈的 Onyx 塞栓術で根治できた頭皮 AVM の 1 例

【著書名】

高野駿¹⁾ 山家弘雄²⁾ 坂口顕弘¹⁾ 西山徹¹⁾ 薮崎肇¹⁾
田中優子¹⁾ 松田芳和¹⁾ 津本智幸¹⁾ 松本浩明¹⁾ 寺田友昭¹⁾

【所属機関】

- 1) 昭和大学藤が丘病院 脳神経外科
- 2) 昭和大学横浜市北部病院 脳神経外科

【連絡先】

連絡先著者：高野駿

昭和大学藤が丘病院 脳神経外科

〒227-8501 神奈川県横浜市青葉区藤が丘 1-30

電話番号：045-971-1151 FAX：045-973-1019

E-mail：623pand1@gmail.com

【キーワード】

Scalp arteriovenous malformation、transvenous embolization、Onyx

【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】頭皮動静脈奇形 (scalp arteriovenous malformation; sAVM) に対して経静脈的 Onyx 塞栓術を用いて根治し得た 1 症例を経験したので報告する。

【症例】右側頭部の拍動性腫瘤を主訴に紹介となった 17 歳女性。脳血管撮影で rt. occipital artery(OA)を主要な栄養血管として 2 本の rt. occipital vein(OV)との間に venous pouch が形成され、rt. superficial temporal artery(STA)、rt. posterior auricular artery(PAA)の分枝からも feeder が流入する sAVM を認めた。右外頸静脈にシースを挿入し、2 本の rt. OV それぞれからバルーンカテーテルをシャント直近まで誘導し、バルーンを拡張して流出路を閉塞させた状態で Onyx を逆行性に流入動脈に到達させる Reverse pressure cooker technique(RPCT)を用いてシャントを完全に閉塞させた。

【結論】本法は経静脈的アプローチが可能な sAVM の症例に対して有効な治療法となる可能性がある。

緒言

頭皮動静脈奇形 (scalp arteriovenous malformation: sAVM) は比較的稀な疾患であり、頭皮の動静脈間に毛細血管を介さない多様なネットワークを形成する。触知可能な拍動性腫瘤として自覚されることが多く、血管雑音や耳鳴り、頭痛、局所痛、痙攣、出血、頭皮壊死等の症状を伴うことがある^{1,2)}。治療法に関しては、外科的切除術や血管内治療、その併用療法が用いられているが、定まった治療指針

はなく、症例に応じて治療法が選択されている。

今回我々は屈曲蛇行の強い多数の栄養血管(feeder)と複数の流出静脈(drainer)を有する sAVM に対して、バルーンカテーテルで流出路を閉塞した状態で Onyx を逆行性に注入する Reverse pressure cooker technique(RPCT)を用いて経静脈的にシャントを塞栓し根治し得た症例を経験したので報告する。

症例提示

患者：17 歳、女性

既往歴：腰椎椎間板ヘルニア、小児喘息

現病歴：2 ヶ月前から右側頭部に拍動性腫瘤を触知するようになった。右耳で血管雑音を自覚し、不眠となることもあった。近医受診し頭部 MRI で異常を指摘され当科紹介。

入院時現症：意識清明で神経学的異常所見は認めなかった。右耳介後方に 3cm 大の拍動性腫瘤を触知した。発赤や圧痛は認めなかった (Fig 1)。

画像所見：CTA では右耳後方の皮下に sAVM を疑う血管構築を認めた (Fig 1)。脳血管撮影では、rt. occipital artery(OA)を main feeder として、2 本の rt. occipital vein(OV)を drainer とする sAVM を認めた。rt. posterior auricular artery(PAA)と rt. Superficial temporal artery(STA)からの feeder も認めた。2 本の rt. OV は合流して rt. external jugular vein(EJV)へ流出していた (Fig. 2)。インフォームドコンセントを得て、適応外使用であったが治療を行った。また高難度医療技術申請を行っている。

血管内治療経過：全身麻酔下で手技を開始した。6Fr シースを右大腿動脈に挿入して 4Fr JB2(メディキット，東京)を rt. OA の起始部に留置した。マイクロカテーテルの操作性を高めるため、右外頸静脈を直接穿刺し 5Fr シースを rt. EJV に留置した。ヘパリン 5000 単位を静注して全身ヘパリン化した。以降、30 分毎に Activated clotting time(ACT)を測定して ACT250 以上を保つようにした。外頸動脈撮影を行い、ロードマップ下に 2 本の Scepter C 4x10mm (テルモ，東京)を CHIKAI 0.014 200cm(朝日インテック、愛知)を用いてそれぞれ 2 本の rt. OV から venous pouch 直近まで誘導した。そこで 2 本の Scepter C を inflation させて drainer を閉塞させた状態で、venous pouch の下方に留置した Scepter C(Figure 2 d 白矢頭)から Onyx34 を注入した。まず venous pouch に Onyx が充填され、その後逆行性に各 feeder にも到達させた。3ml 注入した時点で撮影すると、わずかにシャント残存していたため、続いて Onyx18 を 1.5ml 注入した。その後撮影するとシャントは消失していた。Venous pouch 下方の Scepter C(Figure 2 d 白矢頭)を deflation した後に Onyx18 を 0.5ml 注入して venous pouch 下方の OV を閉塞させた。続いて venous pouch 上方の Scepter C (Figure 2 d 白矢印)からも deflation した後に Onyx18 を 1ml 注入して venous pouch 上方の OV を閉塞させた。Onyx は計 6ml 使用した(Fig3)。Scepter は問題なく抜去できた。右外頸動脈撮影でシャントの完全消失を確認し手技終了とした(Fig 4)。治療直後は病変部の腫脹と軽度の圧痛を認めたが、翌日には消失し、雑音や拍動も消失した。色調変化は認めなかったが、Onyx 塊は固く触知した。6 ヶ月後に脳血管撮影を行い、

sAVM の消失を認めた (Fig 5)。その後、術後 2 年の時点で身体所見、MRI 上の再発は認めていない。

考 察

1764 年に Hunter によって肘の動静脈奇形が初めて報告され、1833 年に Brecht により頭皮の血管奇形に対し cirroid aneurysm という名称がつけられた^{3,4)}。それ以降、aneurysmal serpentinum、aneurysm cirroides、plexiform angioma、arteriovenous fistula、arteriovenous malformation⁵⁾などの様々な名称で呼ばれている。

頭皮の様々な血管が関与し得るが、STA や OA が feeder となることが多い^{5,6)}。まれに頭蓋内血管が feeder となることもある⁶⁾。発症要因は先天性と後天性の 2 つに分類され、後天性要因としては鈍的な外傷例が多いが、頭皮移植⁷⁾や開頭術⁸⁾、顎関節症の関節鏡検査⁹⁾等が報告されている。先天性の原因は不明である。本症例では外傷歴等は明らかでない。sAVM は小さな皮下腫脹から始まり、drainer の発達とともに拍動性腫瘤と拡張した drainer を触知するようになり審美的問題が出現する^{1,2)}。治療の適応は出血の予防や拍動性腫瘤による美容的問題、局所痛や耳鳴り症状の悪化、A-V シャントによる心不全悪化の場合である^{2,10,11)}。

治療法は外科的切除術と血管内治療があり、病変の血管構築に応じてそれぞれ単独での治療、または併用療法が選択されている。2000 年以降では、外科的切除術 62 例、血管内治療 40 例、併用療法 9 例の報告を認めた。以前は外科的切除術が第一選択であり、低コストで再発率も低い、切除部の頭皮壊死や大量出血の合併症報告があ

る¹²⁾。また、術後の血管攣縮により病変を完全に切除したと誤った認識をしてしまうという報告もある²⁾。近年は末梢まで到達可能なマイクロカテーテル等の機器や塞栓物質、塞栓技術の発展により血管内治療が選択される症例が増えている。血管内治療の手段としては経動脈的アプローチ、経静脈的アプローチ、直接穿刺法があり、上述の報告の中では、経動脈的アプローチ 13 例、経静脈的アプローチ 4 例、直接穿刺法 25 例、経動脈的 + 直接穿刺法 4 例の報告が認められた。そのうち、塞栓物質として Onyx が 22 例 (Table 1)^{13,14)}、NBCA が 24 例、コイルが 12 例、その他 (トロロンビン、ポリドカノール、ゼラチン) が 5 例で使用されていた。血管内治療単独で根治を得るためには全ての feeder とシャントポイントを閉塞させる必要がある。Feeder が単独でシャントポイント直近までのアプローチが容易な症例では経動脈的アプローチで根治可能となることが多い。ただし Feeder となる外頸動脈の分枝は著しく屈曲蛇行していることが多く、シャントポイントから離れた位置での塞栓となった場合、全ての feeder、drainer まで塞栓物質が浸透せずに不十分な塞栓となり、側副血行路の発達により再発を来すだけでなく、塞栓前よりも複雑な形状を構築してさらにアプローチ困難となる。頭皮壊死や脱毛の原因ともなりうる^{1,15)}。一方、drainer は拡張していることが多く、有効なアクセスルートとなり得る上に、マイクロカテーテルが抜去困難となる可能性も低いと考えられる。しかし、sAVM の drainer の多くは Superficial temporal vein (STV) などの頭皮静脈であり²⁾、静脈側への逆流は肺循環へ流出する可能性があり注意が必要である。経骨髄性に横静脈洞や S 状静脈洞への流出を認めた報告

もある¹⁶⁾。直接穿刺法は簡便で、マイクロカテーテルを使用しないため低コストであり、feederが tortuous な病変にもアプローチ可能である。用手的に静脈側を圧迫することで肺循環への逆流を防ぎつつ、各 feeder に圧入させることが可能となるが、術後の穿刺部の疼痛や腫脹、感染の報告がある¹⁷⁾。

本症例は若年女性であり、侵襲度と出血リスクから血管内治療を選択した。複数の蛇行の強い feeder とシャントポイントからなる複雑な血管構築を認め、経動脈的アプローチではシャントポイント直近へのアプローチは困難と考えられた。しかし、drainer の 2 本の拡張した OV を介して venous pouch までマイクロカテーテルを誘導することは可能と考えられたため、経静脈的アプローチを選択した。直接穿刺法も可能と考えられたが、外科的切除術と同様に頭皮への侵襲と言う点で選択しなかった。根治のためには venous pouch と流入する全ての feeder を逆行性に閉塞させる必要があるため、塞栓物質として Onyx を選択した。Onyx は NBCA とは異なり、非接着性という性質を生かして計画的で持続的な注入が可能となり AVM の塞栓率を高めることができる^{1,13,18)}。これまでの sAVM に対して Onyx を用いた文献では再発の報告は認めていない。合併症としては皮下への Onyx 漏出による皮膚の黒色変色(1 例)が報告されており、その後手術で切除されている。皮下に残存する Onyx 塊に対して切除術が施行された症例も 2 例ある¹⁹⁾。本症例においても触知可能な Onyx 塊の残存を認めている。Onyx の溶媒である DMSO には細胞毒性が知られており、1 日の使用量は 4.5ml 以下とされている。現時点では DMSO による頭皮への毒性を示す報告は認めておらず、

本症例では Onyx の使用量が 6.0ml と多くなってしまったが有害事象は認めていない。Onyx の硬化時間に関しては 3 分以上経過した場合は完全に硬化しているものと考え、本症例に関しても最初の Onyx 注入から 7 分経過した後バルーンを解除し、静脈側への逆流は認めていない。sAVM に対する Onyx は適応外使用であることを十分にインフォームド・コンセントすることも必要である²⁰⁾。

Onyx の注入方法は proximal balloon protection の上で Onyx を逆行性に feeder へ注入する RPCT を選択した。Venous pouch の直近にバルーンカテーテルを誘導して drainer を閉塞させることで、肺循環への逆流を防ぎつつ、各 feeder へ glue を圧入し塞栓することが可能となった。バルーンカテーテルとしてはダブルルーメン構造の Scepter C を使用している。過去にも balloon protection を用いた経静脈的アプローチ法が報告されているが¹³⁾、シングルルーメン構造の Hyperform(メドトロニック、東京)が使用されていた。シングルルーメン構造のバルーンカテーテルの場合、Onyx 注入用のマイクロカテーテルが必要となるが、Scepter C の場合は単独で balloon protection と Onyx 注入が可能となるため手技が簡便であり、本症例のような複数の太い drainer を同時に閉塞させつつ Onyx を注入することができる。Scepter C の最大外径が 2.8Fr のため、理論上は 8Fr のガイディングカテーテルが留置可能であれば 3 本の drainer が同時に対処可能と考えられる。また、先端外径が 2.1Fr とその他のバルーンカテーテルよりも細いことも遠位への誘導性の点で有用である。ただし、drainer が著しく拡張しバルーン径を超えてしまい閉塞不可能な場合はコイルの使用や直接穿刺法などを選択する必要

がある。Balloon protectionではなく coilを venous pouch の直近に留置することで Onyx の逆流を防ぐ方法も報告されているが¹⁾、この方法も閉塞させる drainer1 本につき 2 本のマイクロカテーテルが必要となるため操作が煩雑であり、。さらに静脈側でのコイル留置は distal migration の危険性もある。今回我々が行った Scepter C を使用した PRCT は、sAVM に対する経静脈的アプローチ法として非常に簡便で効果的な治療法となり得ると考えられる。

結 語

Reverse pressure cooker technique を使用した経静脈的 Onyx 塞栓術により閉塞し得た頭皮動静脈奇形の 1 例を報告した。

この手法は経動脈的アプローチでは根治困難な複雑な血管構築を有する症例に対しても、アプローチ可能な静脈構造が存在すれば簡便で有効な治療法となり得る。

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) Ni W, Tian Y, Gu Y, et al. Transvenous endovascular treatment for scalp arteriovenous fistulas: Results with combined use of Onyx and coils. World Neurosurg 2017 ; 107: 692-697.
- 2) Zheng J, Guo Z, Zhang X, et al. Intravascular embolization versus surgical resection for patients with scalp arteriovenous

fistula. Chinese Neurosurgical Journal 2019; 5-3.

3) Elkin, D.C. Cirroid Aneurysm of scalp. Ann. Surg 1924; 80: 332-340.

4) Schechter MM, Gutstein RA. Aneurysms and arteriovenous fistulas of the superficial temporal vessels. Radiology 1970; 97: 549-557.

5) Johari H, Shahriarirad R, Erfani A, et al. High flow scalp arteriovenous malformation: A case report. World Journal of Plastic Surgery 2020.

6) Zheng F, Augustus Pitts H, Goldbrunner R, et al. Traumatic arteriovenous fistula of the scalp in the left temporoparietal region with intra- and extracranial blood supply. Case Rep Vasc Med. 2016.

7) Bernstein J, Podnos S, Leavitt M. Arteriovenous fistula following hair transplantation. Dermatol Surg 2011; 37: 873-875.

8) Amlashi SF, Riffaud L, Morandi X. Arteriovenous fistula of superficial temporal artery: An exceptional complication of the pterional approach. J Neurol Neurosurg Psychiatry 2004; 75: 1077-1078.

9) Ki HJ, Lee HK, Hur JW, et al. Post-traumatic arteriovenous fistula of the scalp. J Korean Neurosurg Soc 2015; 58: 298-300.

10) Xue B, Yi L, Chao Y. Surgical resection of a complex multiple scalp Avf without preoperative embolization: a case report. Turk Neurosurg 2015; 25: 638-42.

11) Whiteside OJ, Monksfield P, Steventon NB, et al. Endovascular

embolization of a traumatic arteriovenous fistula of the superficial temporal artery. *J Laryngol Otol* 2005; 119: 322-4.

12) Gurkanlar D, Gonul M, Solmaz I, et al. Cirroid aneurysms of the scalp. *Neurosurg Rev* 2006; 29: 208-212.

13) Thiex R, Wu I, Mulliken JB, et al. Safety and clinical efficacy of Onyx for embolization of extraclinical head and neck vascular anomalies. *Am J Neuroradiol* 2011; 32: 1082-6.

14) Burrus TM, Miller GM, Flynn LP, et al. Symptomatic left temporal arteriovenous traumatic fistula. *Neurology* 2009; 73: 570.

15) Dalyai RT, Schirmer CM, Malek AM. Transvenous balloon-protected embolization of a scalp arteriovenous fistula using Onyx liquid embolic. *Acta Neurochir* 2011; 153: 1285-90.

16) Corr PD. Cirroid aneurysm of the scalp. *Singap Med J*.2007; 48:268-9.

17) Youn SW, Lee NJ, Suh SI, et al. Direct-puncture embolization of scalp arteriovenous fistulae -Technical note on the circular compression device. *Neurol Med Chir* 2012; 52: 525-528.

18) Dabus G, Pizzolato R, Lin E, et al. Endovascular treatment for traumatic scalp arteriovenous fistulas: results with Onyx embolization. *J Neurointerv Surg* 2014; 6: 405-8.

19) Arat A, Cil BE, Vargel I, et al. Embolization of high-flow craniofacial vascular malformations with Onyx. *AJNR Am J Neuroradical* 2007; 28: 1409-14.

20) Kuwajima A, Chokyu K, Terada T, et al. Two cases of

arteriovenous fistula of the scalp in which the pressure cooker technique was useful. Journal of Neuroendovascular Therapy 2018; 12: 416-422.

図表の説明

Figure 1

The clinical photo(A) shows 30mm-sized pulsatile mass behind the right ear with bruit at night. There was no redness or tenderness. CTA(B) shows abnormal angioarchitecture suggesting scalp arteriovenous malformation.

Figure 2

Lateral digital subtraction angiogram of the right external carotid artery in early(A), capillary(B), and late(C) phase shows scalp arteriovenous malformation supplied from mainly the occipital artery(A, *white arrow*) and the posterior auricular artery(A, *white arrow head*), the superficial temporal artery(A, *black arrow*) and through the venous pouch(B, *white arrow*), draining to the two occipital veins(OVs)(C, *white arrows*) connecting to the external jugular vein(EJV)(C, *asterisk*). The two inflated Scepter balloons in OVs(D, *white arrows*) placed just distal to the venous pouch prevent the migration of the Onyx into the pulmonary artery and help to pull out the Onyx into each feeder retrogradely. External carotid angiogram with the inflated Scepter balloons shows flow

interruption of the OV_s(E, white arrows) except the minor outflow veins(E, black arrows) to the EJ_V.

Figure 3

Schematic diagram of the scalp AVM.

Figure 4

Onyx 34 was injected through the inflated Scepter into the venous pouch(A), and entered into the occipital artery(OA) and the superficial temporal artery(STA) retrogradely(B). Onyx 18 passed through the venous pouch and entered into the distal portion of the OA, STA, and posterior auricular artery(C). DSA of the right external carotid artery after injecting Onyx shows complete occlusion of the AVM(D) and injected Onyx(E).

Figure 5

Angiographic examination at 6 months after embolization shows no sign of arteriovenous malformation(A) and shows Onyx mass(B).

Table 1

Case summaries of scalp AVM treated by using Onyx.

Table 1 : Case summaries of scalp AVM treated by using Onyx

Case	Study	Age(yr)	Sex	Etiology	Approach	Assist Technique	Outcom	Complications
1	[2]	38	Male	T	TAE	None	Cure	None
2	[2]	43	Female	C	TAE (+ surgery)	None	Cure	None
3	[17]	75	Male	C	TAE	Coil + NBCA	Cure	None
4	[17]	63	Female	C	TAE	Coil + NBCA	Cure	None
5	[1]	19	Male	T	TVE	Coil	Cure	None
6	[1]	34	Male	C	TVE	Coil	Cure	None
7	[1]	54	Male	C	TVE	Coil	Cure	None
8	[15]	Early 30s	Male	I	DP	None	Cure	None
9	[15]	Early 40s	Male	I	TAE	None	Cure	None
10	[15]	Early 60s	Female	I	TAE	Coil	Cure	None
11	[19]	13	Male	T	TAE	Coil	Cure	None
12	[19]	15	Female	U	TAE (+ surgery)	None	Cure	None
13	[19]	43	Female	T	TAE	None	Cure	None
14	[13]	60	Male	C	TVE	Balloon	Cure	None
15	[20]	25	Male	T	TAE	Coil	Cure	U
16	[16]	7	Male	U	TAE	EC	Cure	None
17	[16]	9	Male	U	TAE, TVE, DP	Balloon, EC	Cure	None
18	[16]	25	Female	U	TAE	Balloon	Cure	None
19	[16]	26	Female	U	DP	EC	Cure	None
20	[16]	33	Male	U	DP	EC	Cure	None
21	[16]	24	Male	U	DP	EC	Cure	Blackish discoloration at injection site
22	[11]	40	Male	T	TAE	Coil	Cure	None

T: traumatic, C: congenital, I: iatrogenic, TAE: transarterial embolization, TVE: transvenous embolization, DP: direct puncture, EC: external,U: unknown

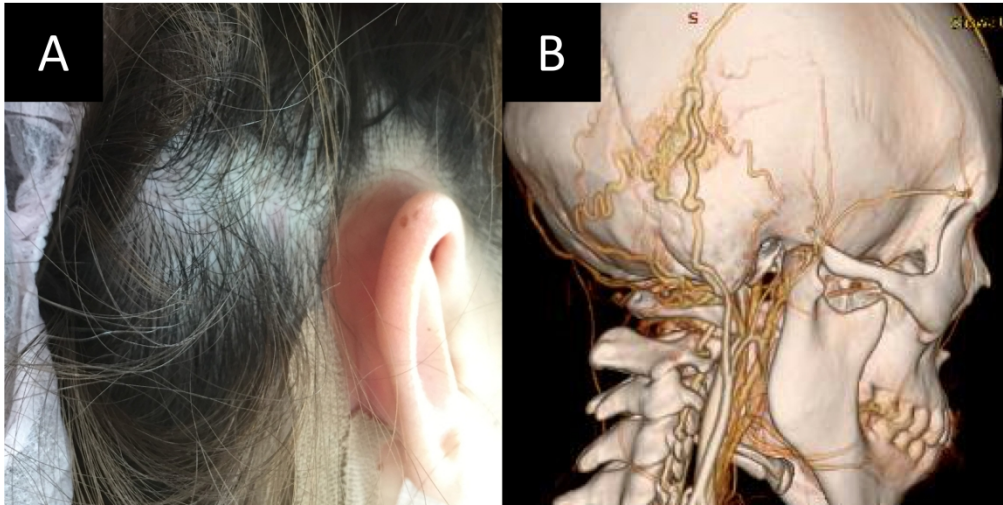


Figure 1

420x211mm (300 x 300 DPI)

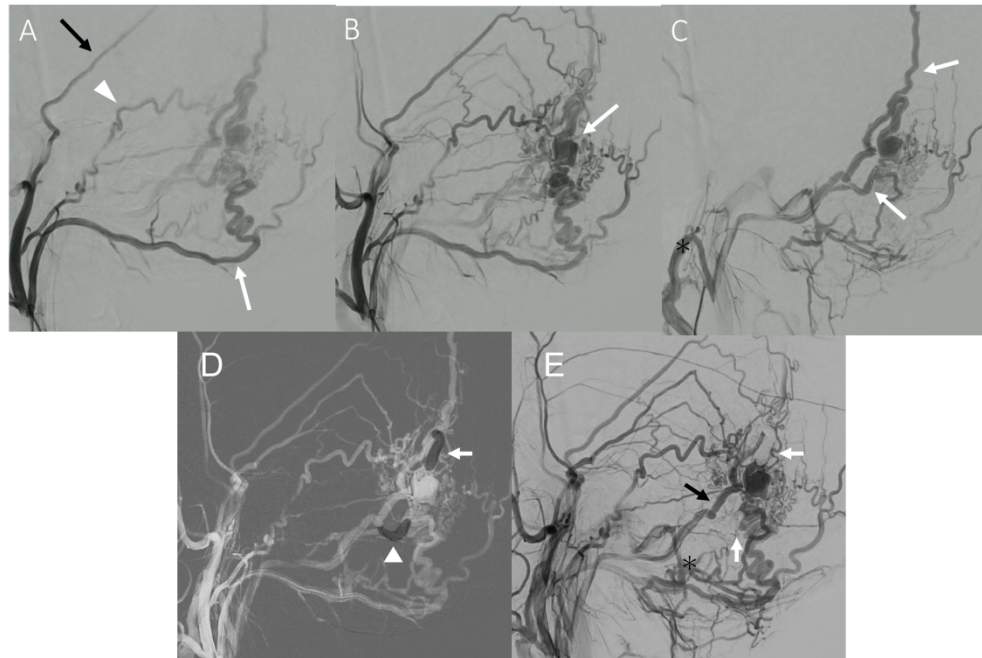


Figure 2

409x271mm (300 x 300 DPI)

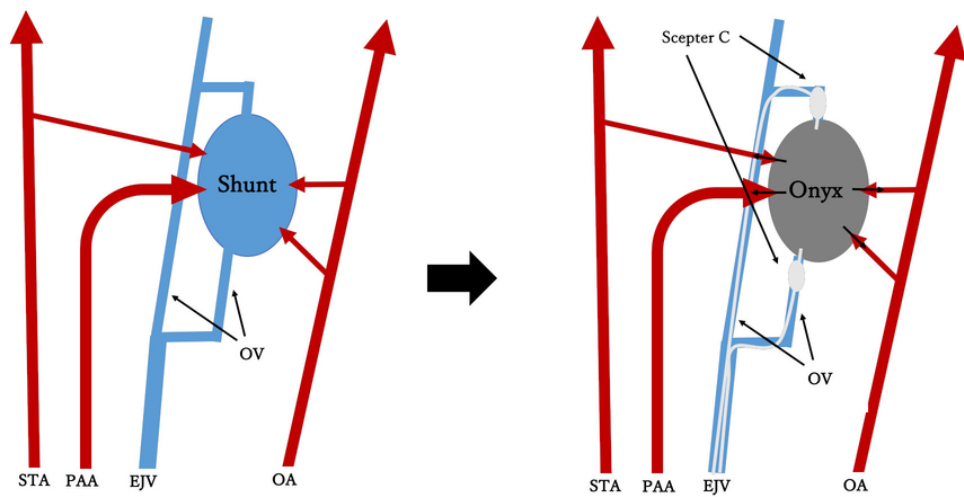


Figure 3
37x20mm (600 x 600 DPI)

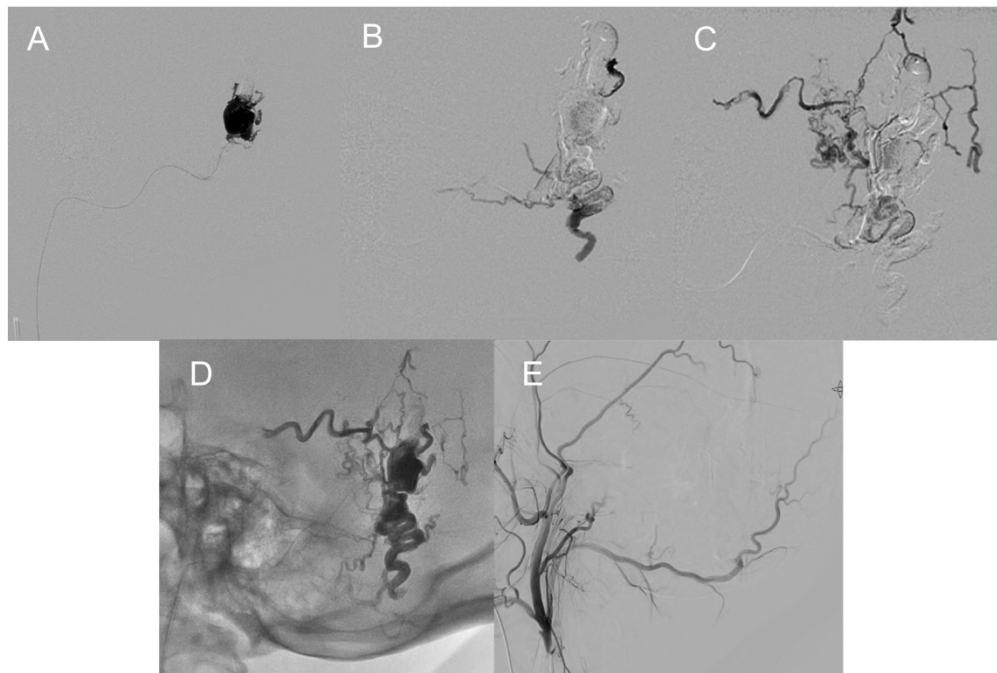


Figure4

406x272mm (300 x 300 DPI)

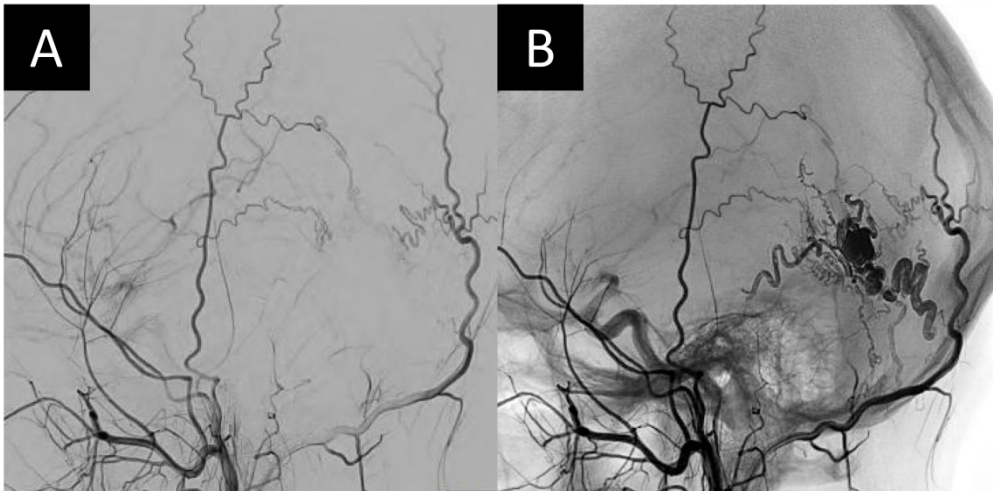


Figure 5

397x197mm (300 x 300 DPI)