

論文種別：症例報告

タイトル：dual-lumen balloon catheter を用いた transarterial embolization にて治療し得た翼口蓋窩動静脈シャント疾患の一例

著者：中山 禎理<sup>1)</sup>，寺田 友昭<sup>1)</sup>，和田 晃<sup>2)</sup>，藪崎 肇<sup>1)</sup>

所属施設：1) 昭和大学藤が丘病院脳神経外科

2) 昭和大学江東豊洲病院脳神経外科

連絡者：氏名；中山 禎理

所属施設；昭和大学藤が丘病院脳神経外科

住所；神奈川県横浜市青葉区藤が丘 1-30

電話番号；045-971-1151

e-mail；[sadanakayama@hotmail.co.jp](mailto:sadanakayama@hotmail.co.jp)

キーワード：翼口蓋窩，硬膜動静脈瘻，脳動静脈奇形，経動脈塞栓

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。

dual-lumen balloon catheter を用いた transarterial embolization  
にて治療し得た翼口蓋窩動静脈シャント疾患の一例

## 要旨

目的：今回我々は，superior ophthalmic vein 還流障害で発症した翼口蓋窩動静脈シャント疾患に対し，transarterial balloon-assisted embolization で合併症なく治療し得た稀な症例を経験したので，報告する．

症例：57歳男性，右眼球結膜充血，右眼球突出，右眼瞼浮腫などを認め，血管撮影にて ophthalmic artery の分枝，および，artery of the superior orbital fissure を feeder とし，翼口蓋窩に小集簇血管を形成し，inferior ophthalmic vein を経て superior ophthalmic vein へ流出する動静脈シャントを認めた．artery of the superior orbital fissure から dual-lumen balloon catheter を用いた ONYX による transarterial balloon-assisted embolization で合併症なく治療し得た．

結論：眼窩内，またはその周囲動静脈シャント疾患に対しての transarterial embolization は合併症が少なからず報告されている．今回，稀な疾患である翼口蓋窩動静脈シャント疾患に対して，dual-lumen balloon catheter を用いた ONYX による transarterial balloon-assisted embolization で合併症なく治療し得た．

## 緒言

頭頸部動静脈シャント疾患に対する治療は，ONYX（Medtronic, Minnesota, USA），PHIL（MicroVention TERUMO, 東京, 日本）などの非粘着性液体塞栓物質が開発，導入され，血管内治療 transarterial embolization（TAE）にて良好な成績が得られるようになってきている．<sup>1,2)</sup> 頭頸部動静脈シャント疾患における液体塞栓物質の TAE の際は，ophthalmic artery（OA）や，脳神経への栄養血管への液体塞栓物質の迷入に注意が必要であるが，transarterial balloon-assisted embolization によって，液体塞栓物質のコントロールを高め，合併症を防ぐ報告がされている．<sup>3~5)</sup> 今回我々は，稀な疾患である superior ophthalmic vein（SOV）還流障害で発症した翼口蓋窩動静脈シャント疾患に対し，transarterial balloon-assisted embolization で合併症なく治療し得た症例を経験した．

## 症例提示

57歳男性，（主訴）右眼球結膜の充血（既往）頭部・顔面外傷歴，耳鼻科・眼科領域手術歴含め特記事項なし（現病歴）右眼球結膜の充血を認め近医眼科受診．点眼等で改善なく，前医にてMRI施行され，内頸動脈海綿静脈洞瘻が疑われ当院紹介受診となった．（現症）右眼球結膜充血，右眼球突出，右眼瞼浮腫を認め，右眼球運動は全方向で軽度障害を認めた．（図 1-A）疼痛や顔面感覚障害などの三叉神経障害を含め，他の脳神経障害は認めなかった．眼圧は右 22mmHg，左 10mmHg であった．（放射

線学的検査所見) MRI T2WI で右上眼静脈 SOV の拡張, 右眼球突出を認め, 造影 MRI T1WI にて翼口蓋窩に集簇する異常血管を認めた. (図 1-B) 脳血管撮影では OA の 1st/2nd segment 移行部から下内側後方への muscular branch, および 2nd/3rd segment 移行部から内側後方へ分岐する muscular branch が上方から, maxillary artery の分枝である artery of the superior orbital fissure (ASOF) <sup>6)</sup> が下方から流入する翼口蓋窩の集簇血管を認めた. (図 2-A・B・D・E, 図 3-A・B・C) 流出路は inferior ophthalmic vein (IOV) から SOV を経て, 前方から superficial temporal vein や angular vein を介した facial vein に主に流出し, SOV を経た後方への cavernous sinus への流出路は高度狭窄を認め, わずかに流出している状態だった. (図 2-C・F) 翼口蓋窩の集簇血管に上下に分かれた流入部位があり, 同部位の動静脈シャント疾患と診断したが, 動静脈奇形 (AVM) と動静脈瘻 (AVF) の判別は困難であった. (図 3-D) (治療) SOV から, angular vein にかけて血管蛇行が強いこと, SOV から IOV の合流が鋭角なこと, IOV がシャント部位まで蛇行が強いことなどから静脈アプローチは困難と思われ, TAE を選択した. right external carotid artery に 7Fr FUBUKI ガイディングカテーテル (朝日インテック社, 愛知, 日本) を留置. right internal carotid artery には 4Fr 診断カテを留置した. 7Fr FUBUKI を通して right maxillary artery に 4.2Fr FUBUKI (朝日インテック社) を誘導, ScepterC4×11mm (MicroVention TERUMO) を ASOF, 集簇血管直前まで誘導した. Scepter にて

血管遮断し． ONYX18 を注入開始， total0.31ml 注入した時点で IOV に ONYX 流入を認め， 内頸動脈撮影， 外頸動脈撮影ともに動静脈シャント描出は消失した．（図 3-E~I） ONYX 注入中は OA の分枝 feeder や周囲側副血行路への流入に注意した． 術後数日ですべての症状は改善し， 術後 5 日で退院となった． 術後 29 か月経過し， 症状再発なく， MRI 上も再発は認めていない．

#### 考察

本症例はシャント部が翼口蓋窩下眼窩裂移行部下方， 翼口蓋窩に存在していた． 翼口蓋窩の動静脈シャント疾患は筆者が渉猟し得た範囲では過去の報告は認めなかった． 流入動脈として上方から OA の分枝が， 下方から顎動脈の分枝である ASOF がそれぞれ離れた部位から流入しており， AVM の可能性も考慮し， 治療方針選択を行った． 集簇血管は翼口蓋窩に存在し， 下眼窩裂を通り IOV へ流出していた． 翼口蓋窩は， 三叉神経第 2， 3 枝や翼口蓋神経節， および， maxillary artery の分枝の sphenopalatine artery や Vidian artery， ASOF 含め多数の神経， 動脈が走行しており， 直達手術では侵襲を伴う困難な治療となる．<sup>7)</sup> また， 本症例は症状の増悪を認めており， 治癒に時間の要する放射線治療は選択せず， 血管内治療を行う方針とした． 動静脈シャント疾患として AVM と AVF があげられるが， 本症例のように微小なナイダスの AVM と AVF を鑑別することは非常に困難である． 血管内治療において， AVF であれば流出静脈の塞栓で治療可能であるが， AVM であれば流出静脈の塞栓のみでは

出血の危険がある。本症例の治療方針では、アプローチが困難であることと **AVM** とした場合のリスクも考慮し **TVE** は選択せず、**AVF** であったとしても治療可能な、ナイダス近傍の **feeder** 抹消までカテーテルを進めることができた **ASOF** からの **TAE** を行った。**ONYX** に代表される非粘着性液体塞栓物質注入に **dual-lumen balloon catheter** を使用した **transarterial balloon-assisted embolization** を用いることで、塞栓物質のコントロールが良くなることで合併症を減少させ、根治率をあげることが期待できると報告されている。<sup>3~5)</sup> 本症例では、**ScepterC** を用い、末梢まで誘導後バルーンにより流入血管を遮断して **ONYX** を注入したことで、微妙な注入コントロールが可能となり、**feeder** とその分枝に過度な塞栓を行わずに、異常集簇血管、一部流出静脈を塞栓することが可能となった。**dual-lumen balloon catheter ScepterC** からの **ONYX** 注入に際しては、抹消への誘導困難や誘導時、バルーンなどによる血管損傷の危険性、**ONYX** の逆流がほとんどなく進展していくため、他の **feeder** や側副路、神経への栄養血管などに迷入していく可能性があるなどの注意点が考えられる。本症例含め、我々は液体塞栓物質を用いた **TAE** の際は、注入を止める指標となる **feeder** や流入方向にモニターへ直接マークすることで塞栓物質の迷入の予防を行っている。翼口蓋窩の動静脈シャント疾患は渉猟し得なかったが、本症例と似通った血行動態、病態を呈することが多い眼窩周囲の **AVF** であった場合も、佐藤らが自症例を含め報告した 27 例や、他の症例報告から治療方法が確認し得た 31 例中 10 例は **TAE** が

選択されているが，その内 3 例に視野障害の合併症を認めている．<sup>8~13)</sup> また，血管撮影上は描出できない微細な側副路や神経への栄養血管なども液体塞栓物質の迷入や塞栓される可能性があるため，本症例のような注入血管 **ASOF** を含めた **maxillary artery 3rd part** からの液体塞栓物質注入に際しては，**OA** や **inferior lateral trunk**，**meningohypophyseal trunk** との吻合を有していることや，特に翼口蓋窩は翼口蓋神経節，三叉神経なども走行する部位であることから，術前に視野障害，眼球運動障害，顔面感覚障害，顔面神経障害，咬筋の障害の可能性などを十分に説明する必要がある．また，過去に液体塞栓物質注入前に他の **feeder** にコイル塞栓を行うことで，液体塞栓物質の迷入を防いだ報告もあり<sup>13)</sup>，他の **feeder** のコイル塞栓も有用な可能性がある．その際は，追加治療が必要となった際のアプローチルートを潰す可能性があるため，コイルで枝払いをする **feeder** は十分に検討する必要がある．

#### 結語

非常に稀と思われる **SOV** 還流障害で発症した翼口蓋窩動静脈シャント疾患の一例を経験した．**transarterial balloon-assisted embolization** によって，治療の根治性，安全性を高めることが期待できる．

#### 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.Rezende MT,Piotin M,Mounayer C,et al.Dural arteriovenous fistula of the lesser sphenoid wing region treated with Onyx: technical note. *Neuroradiology* 2006;48:130–34.
- 2.Abud T.G.,Nguyen A.,Saint-Maurice J.P.,et al.The Use of Onyx in Different Types of Intracranial Dural Arteriovenous Fistula. *AJNR Am J Neuroradiol* 2011;32:2185–91.
- 3.Clarençon F,Di Maria F,Gabrieli J,et al.Double-lumen balloon for Onyx® embolization via extracranial arteries in transverse sigmoid dural arteriovenous fistulas: initial experience.*Acta Neurochir (Wien)* 2016;158:1917–23.
- 4.Kim JW,Kim BM,Park KY,et al.Onyx embolization for isolated type dural arteriovenous fistula using a dual-lumen balloon catheter.*Neurosurgery* 2016;78:627–36.
- 5.Zamponi Jr J.O.,Trivelato F.P.,Rezende M.T.S.,et al.Transarterial Treatment of Cranial Dural Arteriovenous Fistulas:The Role of Transarterial and Transvenous Balloon-Assisted Embolization.*AJNR Am J Neuroradiol* 2020;41:2100–2106.
- 6.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.*AJNR Am J Neuroradiol*.2015;36:1741– 47.



7. Hitotsumatsu T, Rhoton AL. Unilateral upper and lower subtotal maxillectomy approaches to the cranial base: microsurgical anatomy. *Neurosurg* 2000;46:1416–1453.
8. SATO H., MIYACHI S., HASHIMOTO A., et al. Transarterial Embolization of Intraorbital Dural Arteriovenous Fistula: A Case Report. *No Shinkei Geka*. 2019;47:777-83.
9. Terakado T., Nakai Y., Tsukada K., et al. A Case of Orbital Dural Arteriovenous Fistula with Exophthalmos Treated by Transarterial Embolization. *Journal of Neuroendovascular Therapy* 2019;13:314-19.
10. Lv X, Li W, Liu A, et al. Endovascular treatment evolution for pure intraorbital arteriovenous fistula: three case reports and literature review. *Neuroradiol* 2017;30:151-59.
11. Akamatsu Y., Kubo Y., Chida K., et al. Intraorbital Arteriovenous Fistula Presenting with Impaired Extraocular Movement After a Provocation Test at the Third Segment of the Ophthalmic Artery. *World Neurosurg* 2019;131:1-5.
12. Diaz R., Rodriguez R., Almeida P., et al. Spontaneous Intra-orbital Arteriovenous Fistula: A Rare Cause of Proptosis. *Cureus* 2019;11:e5984.
13. Terakado T., Nakai Y., Tsukada K., et al. A Case of Orbital Dural Arteriovenous Fistula with Exophthalmos Treated by Transarterial Embolization. *Journal of Neuroendovascular Therapy* 2019;13:314–319.

## 図表の説明

### 図 1

A：初診時右眼球結膜充血，眼球突出，右眼瞼浮腫を認める．

B：初診時MRIT2 右 superior ophthalmic vein 拡張（矢印），右眼球突出を認める．

### 図 2

A：治療前右内頸動脈撮影正面像動脈相 B：治療前右内頸動脈撮影側面像動脈相． ophthalmic artery 1st/2nd segment 移行部から下内側後方への muscular branch（矢頭），および 2nd/3rd segment 移行部から内側後方へ分岐する muscular branch（矢印）からシャント上方一部が描出． C：治療前右内頸動脈撮影側面像静脈相．血流の多くは前方 superficial temporal vein，および，angular vein を介した facial vein に流出． D：治療前右外頸動脈選択撮影 RAO40° 動脈相． maxillary artery 3rd part から sphenopalatine artery， infraorbital artery が分岐（矢印）． また， artery of the superior orbital fissure（点線）が feeder となり集簇血管を経てシャント部（矢頭）へ流入している． E：治療前右外頸動脈選択撮影側面像動脈相． artery of the superior orbital fissure（矢印）からシャント全体（矢頭）が描出され、 inferior ophthalmic vein（2重矢印）へ流出している． F：治療前右外頸動脈選択撮影側面像静脈相． superior ophthalmic vein から cavernous sinus への流出路は高度狭窄を認める（矢印）．

図 3

A : 外頸動脈撮影 **thin slab maximum intensity projection**(0.4mm厚) **axial**. 下眼窩裂 (点線) 後方にシャント部 (矢頭) を認める. B : 外頸動脈撮影 **thin slab maximum intensity projection**(0.4mm厚) **coronal**. 下眼窩裂 (点線), 蝶口蓋裂 (矢印), 翼上顎裂 (米印) を認め, 下眼窩裂下方翼口蓋窩内側にシャント部 (矢頭) を認める. C : 外頸動脈撮影 **thin slab maximum intensity projection**(0.4mm厚) **sagittal**. 下眼窩裂 (点線) と正円孔 (矢印) の間にシャント部 (矢頭) を認める. D : 治療前総頸動脈撮影 10mm厚とした **slab maximum intensity projection sagittal**. 下眼窩裂後下方翼口蓋窩にシャントを認める (矢印). E : **artery of the superior orbital fissure**末梢ナイダス直近まで誘導された **ScepterC**のバルーン (矢印). F : **artery of the superior orbital fissure**末梢シャント直近まで誘導された **ScepterC**からの選択撮影. シャント, 流出静脈のみが描出. I : **ONYX18**注入時, シャント全体, **inferior ophthalmic vein**へ流入. G : 術後右内頸動脈撮影, および, H : 術後右外頸動脈撮影. 動静脈シャント消失.

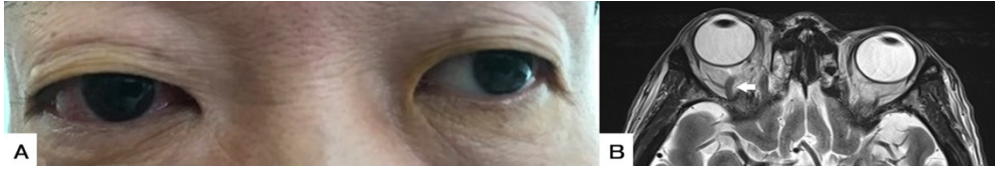


Fig.1

178x29mm (700 x 700 DPI)

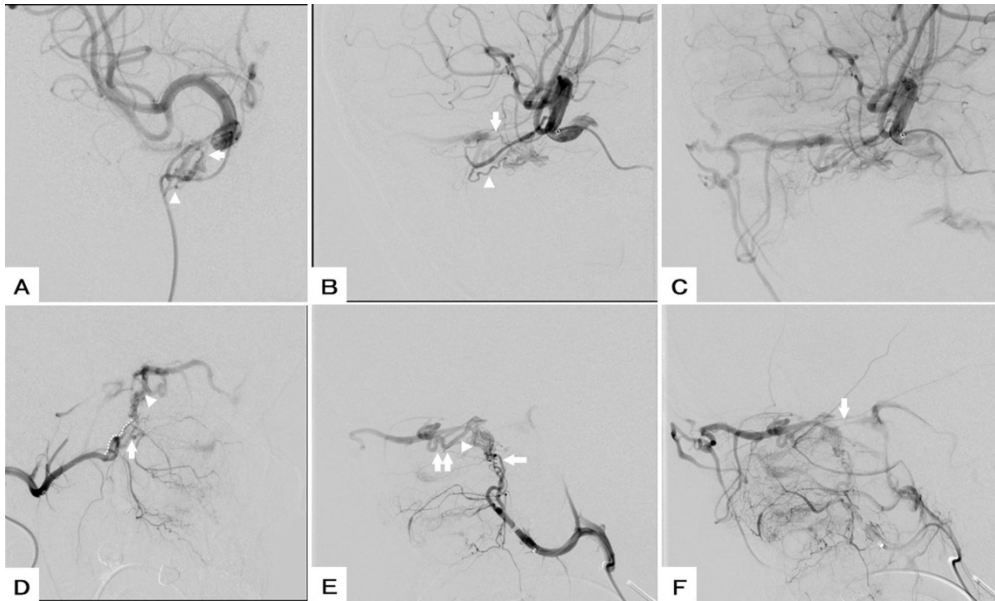


Fig.2

127x75mm (1300 x 1300 DPI)

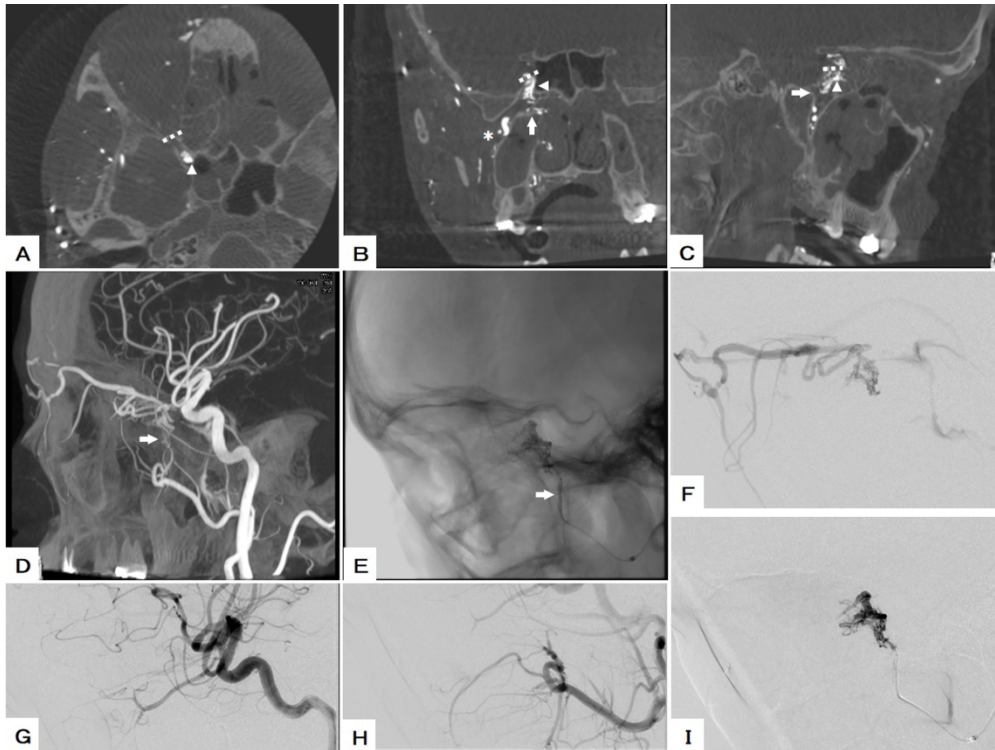


Fig.3

127x94mm (1300 x 1300 DPI)