

骨内病変を伴った舌下神経管部硬膜動静脈瘻の一例

近藤やよい¹⁾ 清末一路²⁾ 堀 雄三¹⁾ 柏木淳之²⁾ 相良佳子²⁾ 田上秀一²⁾ 岡原美香²⁾ 永富博文³⁾ 森 宣²⁾

Anterior condylar vein dural AVF with intraosseous vascular nidus in the hypoglossal canal : a case report

Yayoi KONDO¹⁾ Hiro KIYOSUE²⁾ Yuzo HORI¹⁾ Junji KASHIWAGI²⁾ Yoshiko SAGARA²⁾ Shuichi TANOUE²⁾
Mika OKAHARA²⁾ Hirofumi NAGATOMI³⁾ Hiromu MORI²⁾

1) Department of Radiology, Nagatomi Neurosurgical Hospital

2) Department of Radiology, Oita University Faculty of Medicine

3) Department of Neurosurgery, Nagatomi Neurosurgical Hospital

●Abstract●

Dural arteriovenous fistulas (AVFs) involving the hypoglossal canal and adjacent bony structure are relatively rare. The authors describe a case of 58-year-old male presenting with a pulse-synchronous tinnitus associated with a dural AVF involving the hypoglossal canal. Source images of MR angiography showed abnormal flow signal in the region of the hypoglossal canal with an intraosseous component. A CT scan revealed dilatation of the hypoglossal canal and a venous pouch with bone erosion. 3D-DSA showed the dural AVF in which numerous intraosseous arteriovenous fistulas draining into a venous pouch located posterolateral to the anterior condylar vein. Venous drainage routes were antegrade drainage to the jugular vein and the suboccipital cavernous sinus, and retrograde drainage into the transverse-sigmoid sinus and the cavernous sinus via the inferior petrosal sinus. The lesion was successfully treated by selective transvenous coil embolization, with all symptoms disappearing.

●Key Words●

dural arteriovenous fistula, anterior condylar vein, hypoglossal canal, embolization

1) 永富脳神経外科病院 放射線科

2) 大分大学医学部 放射線科

3) 永富脳神経外科病院 脳神経外科

<連絡先: 〒870-0820 大分市西大道2丁目1-20 E-mail: ykubota@med.oita-u.ac.jp>

(Received August 12, 2007 : Accepted December 8, 2007)

緒言

舌下神経管は頸静脈孔の内下方に位置する骨性導管であり、舌下神経のほか anterior condylar confluence と marginal sinus を交通する anterior condylar vein と呼ばれる導出静脈を含み、後頭蓋底の重要な静脈還流路の1つとなっている。舌下神経管は稀に硬膜動静脈瘻 dural arteriovenous fistulas (dAVFs) の発生部位となり、hypoglossal canal dAVF または anterior condylar vein dAVF と称される。その際舌下神経管内や周囲に拡張した venous pouch を形成するが、同時に近接する骨内にも連続して拡張した血管構造を認める例が報告されている³⁾。今回、このような骨内病変を伴う舌下神経管部硬膜動静脈瘻を経験したので、文献的考察をあわせ報告する。

症例呈示

症例は58歳男性。3ヶ月前より持続する左拍動性耳鳴を主訴に来院した。既往歴に特記事項はない。MRA元画像にて左舌下神経管内から椎体静脈叢へと連続する拡張した flow signal を認め、舌下神経管部硬膜動静脈瘻が疑われた (Fig.1)。造影CTでは左舌下神経管の拡張と周囲の骨溶解像を伴う拡張した血管構造を認めた (Fig.2)。血管造影では左後頭動脈の多数の硬膜枝と左上行咽頭動脈、左後髄膜動脈を feeder とし、下錐体静脈洞と頸静脈球の合流点の内側下方の venous pouch に還流する硬膜動静脈瘻を認めた (Fig.3)。流出路は、同側内頸静脈への順行性流出路に狭窄がみられ、前述の venous pouch より同側の横-S状静脈洞を逆流して対側内頸静脈へ、また下錐体静脈洞を逆流し intercavernous sinus を介

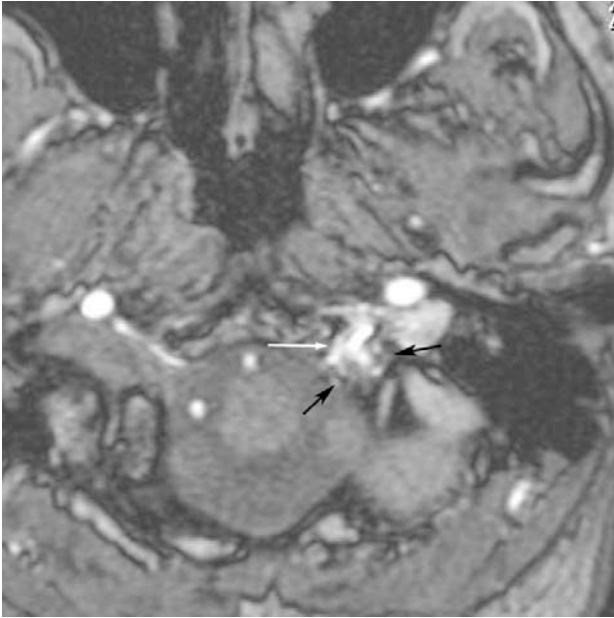


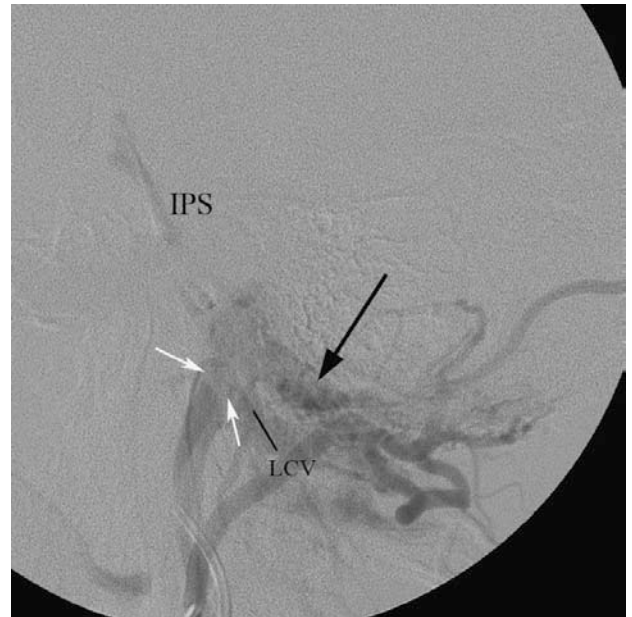
Fig.1 : MR angiography source image showing abnormal flow signal medial to the jugular bulb in the region of the left hypoglossal canal (white arrow), with an intraosseous component (black arrows).



Fig.2 : Postcontrast CT scan revealing dilatation of the left hypoglossal canal (black arrows) and dilated intraosseous vessels with bone erosion (white arrows).



A



B

Fig.3 : Frontal view (A) and lateral view (B) of the left external carotid angiography showing a dural AVF (black arrow) locating medially to the left jugular bulb, fed by the left occipital artery and ascending pharyngeal artery (APA), with retrograde drainage through the left inferior petrosal sinus (IPS) into cavernous sinus, the lateral condylar vein (LCV) to the suboccipital cavernous sinus, and the transverse-sigmoid sinus. Restrictive change (white arrows) of the antegrade drainage into the jugular vein is also noted.

して対側の下錐体静脈洞へと還流していた。またlateral condylar veinを介してsuboccipital cavernous sinusへと還流する経路もみられた。3D-DSA横断再構成画像では、前述のCTでみられた骨内の血管に一致する部に多数の

シャント血管がみられ、前述のvenous pouchに集束していた (Fig.4A-C)。以上の所見よりanterior condylar vein dural AVFと診断した。選択的経静脈塞栓術による根治が可能と判断し、経静脈的塞栓術を施行した。局所

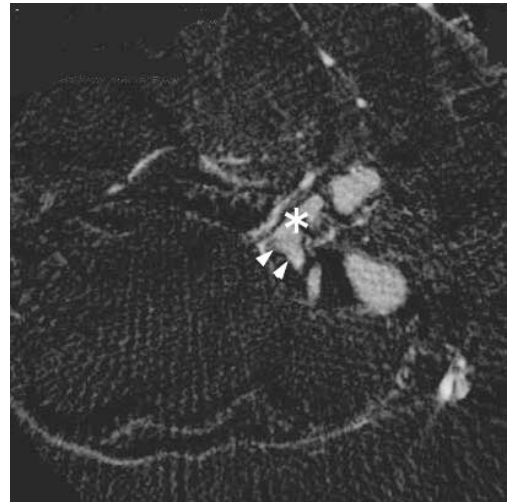
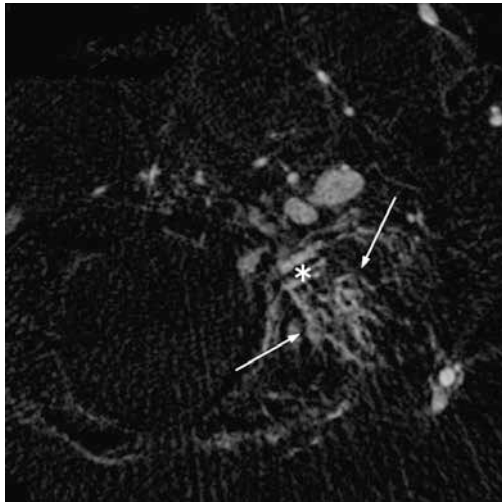


Fig.4-A,B : Axial MPR images of 3D-DSA demonstrating abnormal intraosseous vessels representing arteriovenous fistulas (arrows) draining into a venous pouch (arrow head) adjacent to the anterior condylar vein (asterisk).

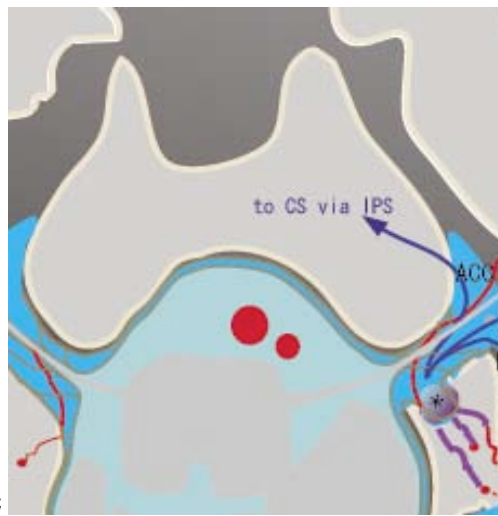


Fig.4-C : Schematic drawing of location and drainage routes of arteriovenous fistula in this case. The intraosseous components of AVF (purple line) drain into a venous pouch (asterisk), and then via the ACC into the inferior petrosal sinus (IPS) - cavernous sinus (CS), the lateral condylar vein (LCV) - suboccipital cavernous sinus (SCS), the sigmoid sinus (SS), and the jugular vein (JV).

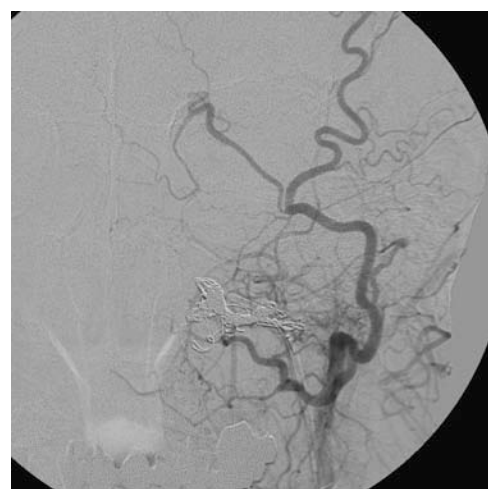


Fig.4-D : The microcatheter is advanced through the jugular vein and anterior condylar vein into an intraosseous venous pouch (arrow).

Fig.4-E : Left external carotid arteriogram obtained immediately after embolization showing disappearance of the dural AVF.

麻酔下で、右大腿静脈アプローチにて5Frガイディングシースと5Fr VTAカテーテルのcoaxial systemを左内頸静脈に留置した。マイクロガイドワイヤー (Synchro-14S, Boston Scientific Japan, Tokyo, Japan)を用い、2.0Fr マイクロカテーテル (Excelsior, Boston Scientific Japan, Tokyo, Japan) を anterior condylar confluenceを経由して左anterior condylar veinへ誘導後、さらに外側部のintraosseous venous pouchへ進めた (Fig.4-D)。同部よりdetachable coil (Detach-11/18, William Cook Europe, Bjaeverskov, DenmarkおよびTrufill-DCS, Cordis, Miami Lakes, FL) を用い塞栓を行った。終了時の血管造影では動静脈瘻の完全消失が得られた (Fig.4-E)。手技に関連した合併症はみられなかった。治療直後のCTでは左舌下神経管内およびその周囲骨内に連続するcoil massを認めた (Fig.5)。左拍動性耳鳴は治療直後より消失し、5ヶ月の経過観察期間中に再発を認めていない。

考 察

舌下神経管はanterior condylar canalとも呼ばれ、後頭蓋底の重要な静脈還流路の一つとして機能している。舌下神経管は頸静脈孔の下内側に位置し、内部を貫通するanterior condylar veinは外側でanterior condylar confluenceを介し内頸静脈と、内側でmarginal sinusと交通している。下方ではlateral condylar veinやposterior condylar veinを介してsuboccipital cavernous sinusに連続する。それぞれのcondylar veinは前方尾側のほぼ同じ部位で合流しており、同部はanterior condylar confluenceと呼ばれる⁹⁾。また、同部はしばしば下錐体静脈洞の尾側端が内頸静脈に合流する部位に吻合する^{4,8)}。よってanterior condylar veinはconfluenceを介し下錐体静脈洞を経由して海綿静脈洞とも交通を有する。したがってanterior condylar veinに生じた硬膜動静脈瘻は、内頸静脈への流出のみならずそれ以外の周辺の静脈叢および下錐体静脈洞やS状静脈洞などへ放射状に流出することが多い¹¹⁾。静脈還流の方向や静脈の閉塞によって出現する症状が異なり、下錐体静脈洞を介して海綿静脈洞に流出する場合には頸動脈海綿静脈洞瘻に類似した眼症状を呈することもある^{6,7,11)}。自験例では下錐体静脈洞から海綿静脈洞への逆流を認めたが、上眼静脈の逆行性描出はなく、眼症状はみられなかった。

このようにanterior condylar veinは舌下神経管内外および頭蓋内外をつなぐ複雑な静脈のネットワークを構成

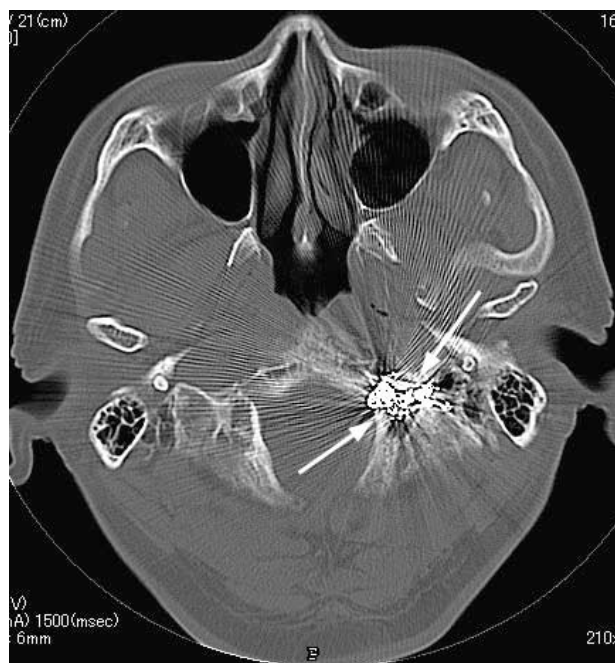


Fig.5 : CT scan following embolization demonstrating the coil mass within the hypoglossal canal and the intraosseous venous pouch (arrows).

している。これらの静脈解剖の知識は症状との関連のみならず経静脈塞栓術の際のアクセスルートの検討においても重要である。anterior condylar vein dural AVFは、過去の報告やわれわれの経験から、多くの場合経静脈的塞栓術単独で治癒しうると考えられる^{6,9)}。治療に際しては、MRIのMIP像やconventional DSAのみではこの領域の硬膜動静脈瘻の血流パターンを解析するのは困難なことが多い。MRA元画像や3D-DSA横断再構成画像を用い、モニター上で連続スライス断面を観察することにより、シャント部位および導出パターンを術前に把握することが有用である。

硬膜動静脈瘻に伴う骨変化に関しては、過去に数例の報告が見られ、頭蓋内においては頭蓋頸椎移行部の硬膜動静脈瘻において多く見られる^{2,3,5)}。なかでも特に舌下神経管近傍に多く、Ernstらの3例のhypoglossal canal dural AVFの報告では、全例に骨変化がみられたとされる³⁾。そのうち2例ではMRA元画像により内頸静脈球内側の骨内に異常血管信号が確認されている。また1例では経静脈的塞栓術後のCTにて、自験例と同様に、舌下神経管内から一部骨内に及ぶcoil massを内頸静脈球内側に認めている。他の部位の動静脈瘻に伴う骨変化に関しては、spinal epidural AVFにおける骨病変合併の報告がみられる¹⁰⁾。これら硬膜動静脈瘻の骨病変の発生についてはその形成機序に関する明確な説明はなされてい

い。また、我々の検索した限りでは舌下神経管部における硬膜の解剖に関する詳細な記述はほとんどみられないが、YousryらによるMRIを用いた34例の正常例での検討ではその88.2%でdural sleeveと思われる脳脊髄液と同様の高信号域が舌下神経に沿って舌下神経管内にみられ、硬膜・クモ膜は舌下神経に沿って舌下神経管内の3分の2に存在すると報告している¹²⁾。このことから、舌下神経管の頭蓋内面側3分の2やその周囲の領域における動静脈瘻では硬膜に発生するものとして矛盾しない。しかし硬膜は骨内には存在しないことから、そのみで本例のような広範な骨病変の発生機序は説明できない。一方、骨膜は同神経管部を被覆しており、硬膜と骨膜は解剖学的に密接に関係することから、本例のような骨内病変に連続する硬膜動静脈瘻は骨膜を主体として発生し骨内に病変が及んでいる可能性があると思われる。最近のAlatakisらの報告では横-S状静脈洞部の硬膜動静脈瘻においてもCTにて骨変化が見られたとされる¹⁾。彼らによると骨変化は主として導出静脈とともに頭蓋冠を貫通する動脈の拡張・蛇行によるものと推測されているが、これら経骨性の短絡が骨膜に存在する可能性もあり、今後の病態生理学的解明が待たれる。

結 論

左拍動性耳鳴で発症した骨内病変を伴う舌下神経管部硬膜動静脈瘻症例を経験した。CTおよびMRIで舌下神経管内からその周囲骨内に及ぶ拡張した血管を認め、術前診断が可能であり、経静脈のコイル塞栓術で根治を得た。同部の硬膜動静脈瘻は選択的経静脈塞栓術で根治可能であり、MRA元画像および3D-DSAの横断再構成画像は術前血管構築の評価に有用である。

文 献

- 1) Alatakis S, Koulouris G, Stuckey S: CT-demonstrated transcalvarial channels diagnostic of dural arteriovenous

- fistula. AJNR 26:2393-2396, 2005.
- 2) Chen CJ, Wai YY, Wang LJ, et al: MRI of intraosseous dural arteriovenous malformation: findings in two cases. J Comput Assist Tomogr 25:133-136, 2001.
- 3) Ernst R, Bulas R, Tomsick T, et al: Three cases of dural arteriovenous fistula of the anterior condylar vein within the hypoglossal canal. AJNR 20:2016-2020, 1999.
- 4) 宜保浩彦, 外間政信, 大沢道彦他, 編, 臨床のための脳局所解剖学. 第3版, 東京, 中外医学社, 2006, 85.
- 5) Kim MS, Oh CW, Han DH, et al: Intraosseous dural arteriovenous fistula of the skull base associated with hearing loss. Case report. J Neurosurg 96:952-955, 2002.
- 6) Kiyosue H, Tanoue S, Okahara M, et al: Ocular symptoms associated with a dural arteriovenous fistula involving the hypoglossal canal: selective transvenous coil embolization. J Neurosurg 94:630-632, 2001.
- 7) 小宮山雅樹, 石黒友也, 松阪康弘, 他: 心拍に同期した強い耳鳴りで発症した舌下神経管内の硬膜動静脈瘻. No To Shinkei 54:830-831, 2002.
- 8) Mitsuhashi Y, Nishio A, Kawahara S, et al: Morphologic evaluation of the caudal end of the inferior petrosal sinus using 3D rotational venography. AJNR 28:1179-1184, 2007.
- 9) Okahara M, Kiyosue H, Tanoue S, et al: Selective transvenous embolization of dural arteriovenous fistulas involving the hypoglossal canal. Intervent Neuroradiol 13:59-66, 2007.
- 10) Suh DH, Choi CG, Sung KB, et al: Spinal osseous epidural arteriovenous fistula with multiple small arterial feeders converging to a round fistular nidus as a target of venous approach. AJNR 25:69-73, 2004.
- 11) 寺田友昭: 硬膜動静脈瘻. 吉田純, 宮地茂編, 脳血管内治療のDo's & Don'ts. 第2版, 東京, 医学書院, 2006, 211.
- 12) Yousry I, Moriggl B, Schmid UD, et al: Detailed anatomy of the intracranial segment of the hypoglossal nerve: neurovascular relationships and landmarks on magnetic resonance imaging sequences. J Neurosurg 96:1113-1122, 2002.

要 旨

JNET 1:31-35, 2007

舌下神経管部硬膜動静脈瘻で比較的稀な骨内病変を伴った一例を報告する。症例は58歳男性で拍動性耳鳴にて発症した。頭部MRIでは左舌下神経管内及び周囲に拡張した血管と思われる無信号域を認め、CTでは舌下神経管の拡張と周囲の溶骨性変化を伴う血管拡張を認めた。また3D-DSAにてanterior condylar vein内側のvenous pouchに還流する多数の骨内動静脈短絡を伴う硬膜動静脈瘻を認めた。還流路としては同側内頸静脈及びsuboccipital cavernous sinusへの順行性流出の他に横-S状静脈洞や下錐体静脈洞から海綿静脈洞への逆流を認めた。選択的経静脈コイル塞栓術にて、動静脈瘻の完全閉塞と症状の消失が得られた。