

小脳静脈性うっ血にて発症した single cortical drainage 硬膜動静脈瘻の一例

大島共貴¹⁾ 宮地 茂¹⁾ 泉 孝嗣¹⁾ 鶴見有史¹⁾ 錦古里武志¹⁾ 細島 理¹⁾ 松原功明¹⁾ 吉田 純¹⁾

A case of single cortical draining dural arteriovenous fistula presenting with cerebellar venous congestion

Tomoki OHSHIMA¹⁾ Shigeru MIYACHI¹⁾ Takashi IZUMI¹⁾ Arihito TSURUMI¹⁾
Takeshi KINKORI¹⁾ Osamu HOSOSHIMA¹⁾ Noriaki MATSUBARA¹⁾ Jun YOSHIDA¹⁾

¹⁾ Department of Neurosurgery, Nagoya University, Graduate School of Medicine

●Abstract●

A 56-year-old male presented with a floating sensation. Brain CT and MRI indicated a focal edematous lesion with mass effects on the left cerebellar hemisphere. Angiography showed a dural arteriovenous fistula (DAVF), classified as Djindjian Type III and Cognard Type III, that had developed on the left occipital artery and left posterior meningeal artery. Transarterial embolization was performed using N-butyl cyanoacrylate (NBCA). We discussed here a case of DAVF with single direct cerebellar cortical drainage and venous congestion. It drained into the left cerebellar cortical vein located in the mid-line, causing severe stagnation of venous drainage of the left cerebellar hemisphere.

●Key Words●

dural arteriovenous fistula, endovascular embolization, venous congestion

¹⁾ 名古屋大学大学院医学系研究科 脳神経外科
<連絡先: 〒466-8550 名古屋市昭和区鶴舞町65 E-mail: tomo-o@med.nagoya-u.ac.jp>

(Received September 8, 2007 : Accepted October 2, 2007)

緒言

頭蓋内硬膜動静脈瘻 (DAVFs) は、硬膜動脈と硬膜静脈の間に異常なシャントが形成された病態である。DAVFは、全ての頭蓋内血管奇形の10-15%と報告されている^{1,8)}。静脈性うっ血あるいは静脈性梗塞で発症するDAVFの中で、特に小脳半球に主座を認めたものは極めて稀である。我々は、小脳症状で発症した、硬膜静脈洞を介さない頭蓋内DAVFの一例を経験し、血管内治療上の興味ある所見を認めたので報告する。

症例呈示

症 例: 56歳 男性

主 訴: 浮遊感、嘔気・嘔吐

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 2007年4月下旬より全身の浮遊感を自覚した。同年5月下旬より嘔気・嘔吐が出現した。同年6月、当院総合診療科を受診した。頭部CTにて、左小脳半球に直径3.5cmの低吸収域を認めたため、脳腫瘍の疑いに

て脳神経外科に紹介された。

入院時現症: 意識清明。運動・感覚障害は認めなかった。脳神経に異常所見を認めなかった。左方の注視性眼振と、軽度の呂律不良を認めた。左半身の軽度運動失調、測定障害、共同運動障害を認めた。

神経放射線学的所見: 頭部CTでは、左小脳半球に直径3.5cmの低吸収域を認めた。mass effectを呈し、第4脳室は圧排されていたが、水頭症は認めなかった。脳MRIでは、T1低信号、T2高信号を示した。拡散強調像では高信号域を認めなかった。造影では、腫瘍自体は造影されないが、周囲に著明な拡張静脈を認めた (Fig. 1)。診断目的の脳血管撮影では、左後頭蓋窩頭蓋冠を主座とする硬膜動静脈瘻 (DAVF) を認めた。主な流入血管は、左後頭動脈 (OA) および左後硬膜動脈 (PMA) であり、硬膜静脈を介さずに、一本の左小脳半球の下小脳半球静脈に流出していた (Fig. 2)。左小脳半球は、逆流血により強い静脈うっ滞を呈し、血液還流が遅延していた。最終的な流出血管は明確ではないが、横静脈洞・S状静脈洞などに狭窄や閉塞所見はなく、正常な静脈還流に使

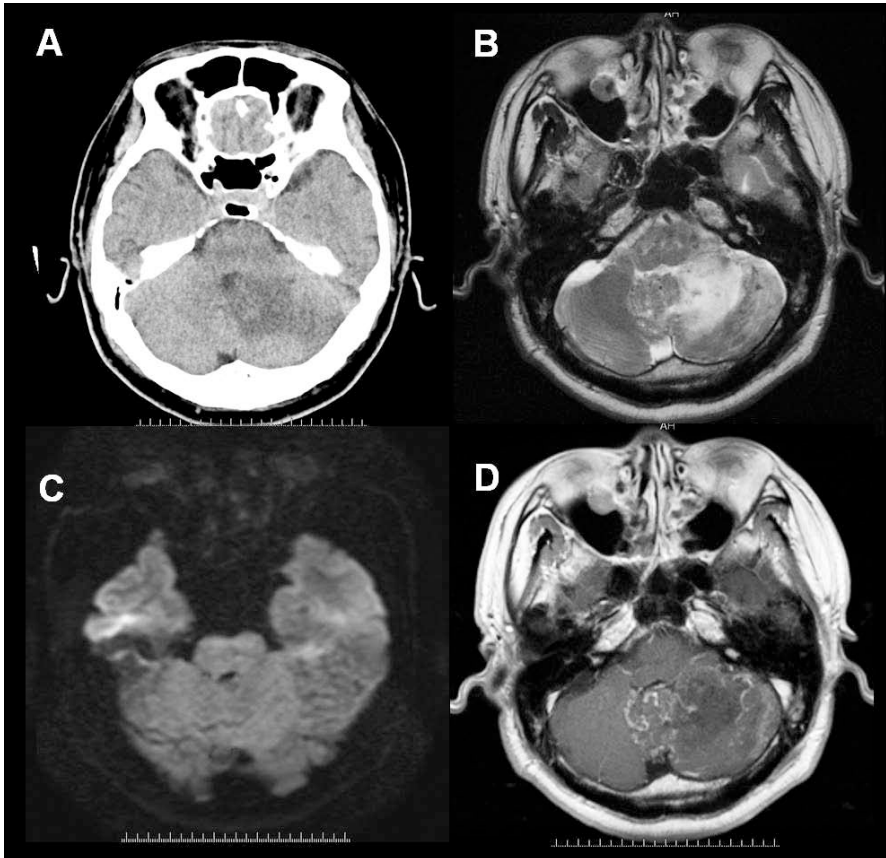


Fig. 1: Initial images. **A:** Plain CT revealing a low-density area in the left posterior fossa. **B:** T2 weighted image showing a high-intensity area. **C:** Diffusion weighted image shows no completed ischemic lesion. **D:** Gadolinium-enhanced T1 weighted image showing abnormal enhancement around the low-intensity lesion.

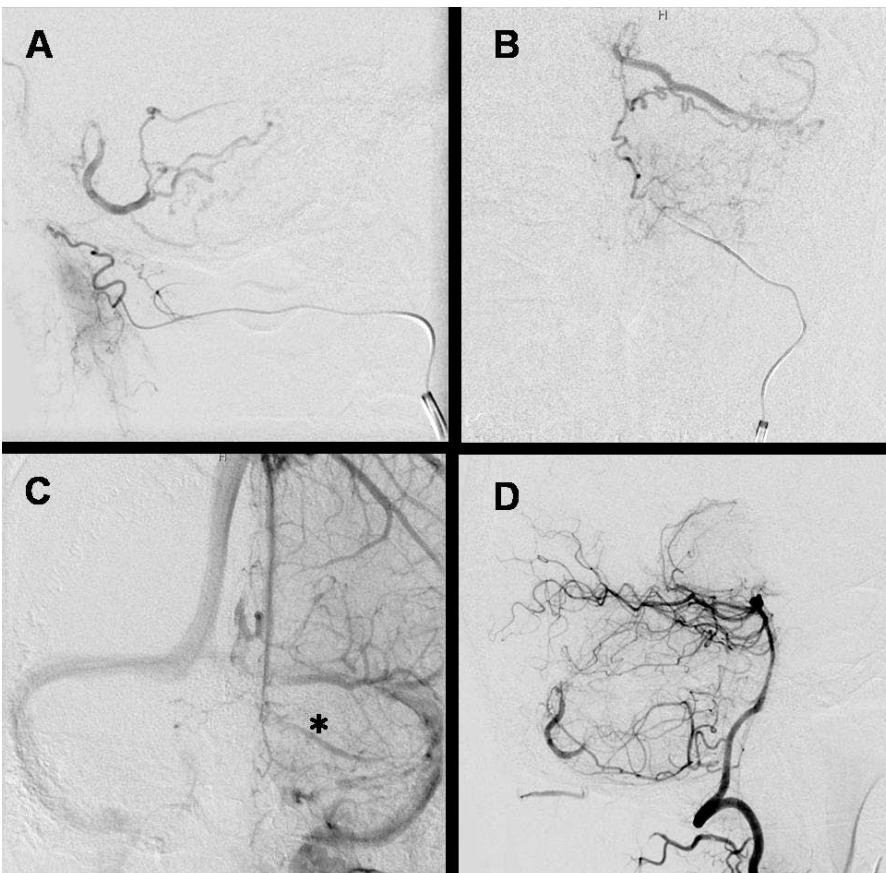


Fig. 2: Preoperative angiograms **A:** Lateral view of selective left occipital artery angiogram revealing early abnormal venous filling. **B:** A-P view of left occipital artery angiogram. **C:** A-P view of left common carotid angiogram showing intact dural sinuses and a left inferior hemispheric vein as a drainage (asterisk). **D:** Lateral view of left vertebral artery angiogram showing the same fistula from posterior meningeal artery.

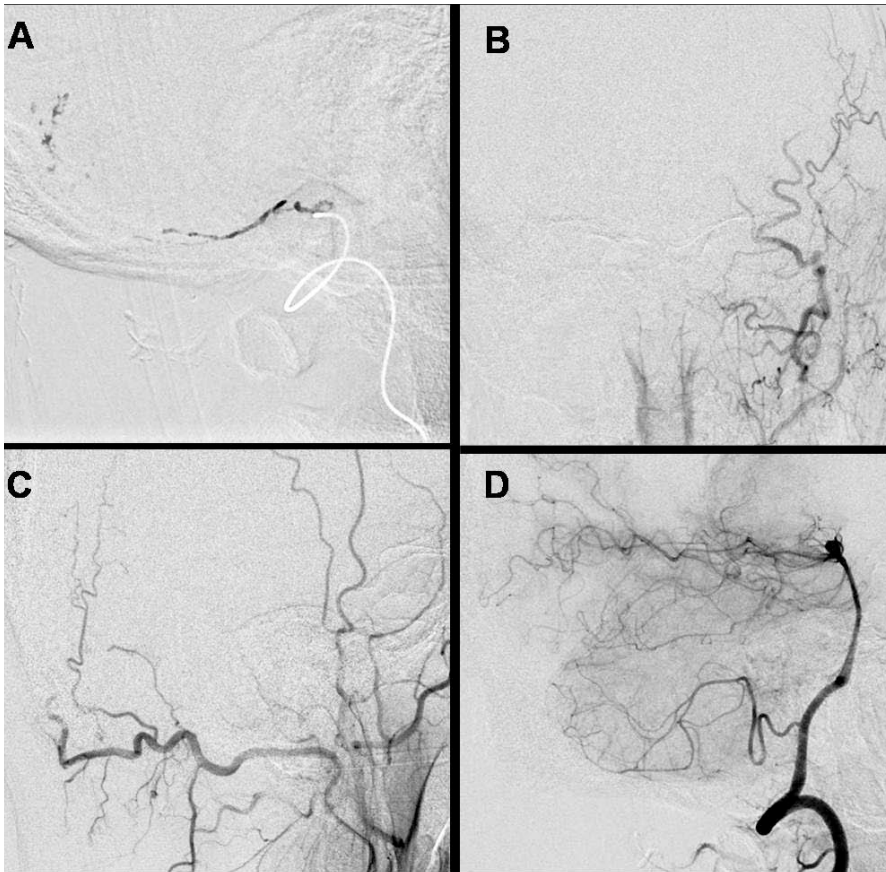


Fig. 3: First transarterial embolization
A: NBCA injection from left posterior meningeal artery. **B:** Postoperative A-P view of left external carotid artery angiogram showing no fistula. **C:** Lateral view of left external carotid angiogram. **D:** Lateral view of left vertebral artery angiogram showing no fistula.

用されていた。

治療経過: 局所麻酔下、左大腿動脈アプローチによる、経動脈的血管内塞栓術 (TAE) を施行した。6-French のガイディングカテーテル (Envoy; Cordis Neurovascular, Miami, FL, USA) を左外頸動脈に留置して、マイクロカテーテル (Transit II; Cordis Neurovascular, Miami, FL, USA) で左後頭動脈を選択した。1% リドカインで誘発試験をした後、20% N-butyl cyanoacrylate (NBCA) で、2本の流入血管を塞栓した。しかし、後頭動脈の血管攣縮によって、シャント部までNBCAが十分に到達しなかった。次に、ガイディングを左椎骨動脈に留置した。マイクロカテーテル (Prowler 10; Cordis Neurovascular, Miami, FL, USA) を後硬膜動脈に、約10mmカニューレションし、誘発試験後20%NBCAにて、シャント部を含めて塞栓することができた。術後の血管撮影では、左総頸動脈・椎骨動脈撮影ともにシャントの消失が確認された (Fig. 3)。

術直後より、頭重感とふらつきの軽減が得られたが、吐気は消失しなかった。術後5日目のMRIにて、浮腫性病変は著変なく、依然としてflow voidを認めた。脳血管

撮影を行ったところ、左後頭動脈などからシャントが描出された。

初回手術より9日目に、再治療を行った。最初に、左後頭動脈の末梢枝をPVA, GDC, free fibered coilを用いて塞栓した。さらに、左中硬膜動脈, 右後頭動脈, 右中硬膜動脈からもシャントの流入がみられたため、同様に塞栓した。術後は、両側総頸動脈・椎骨動脈撮影ともにシャントの消失が確認された (Fig. 4)。

2回目の術後7日後に行ったMRIでは、浮腫性病変の縮小とflow voidの消失が確認できた。術後9日目に退院となり、1カ月の経過観察にて再発の徴候はみられていない。

考 察

本症例は、複数の流入血管が単一の瘻孔より、硬膜静脈洞を介さずに、単一の皮質静脈に流出するDAVFである。外傷や手術の既往はなく、血管病変を合併するような全身性疾患の既往も認めなかった。深部静脈, 直静脈洞, 両側の横静脈洞・S字状静脈洞から頸静脈球部に閉塞・狭窄所見はなかった。下小脳皮質静脈が静脈洞交会

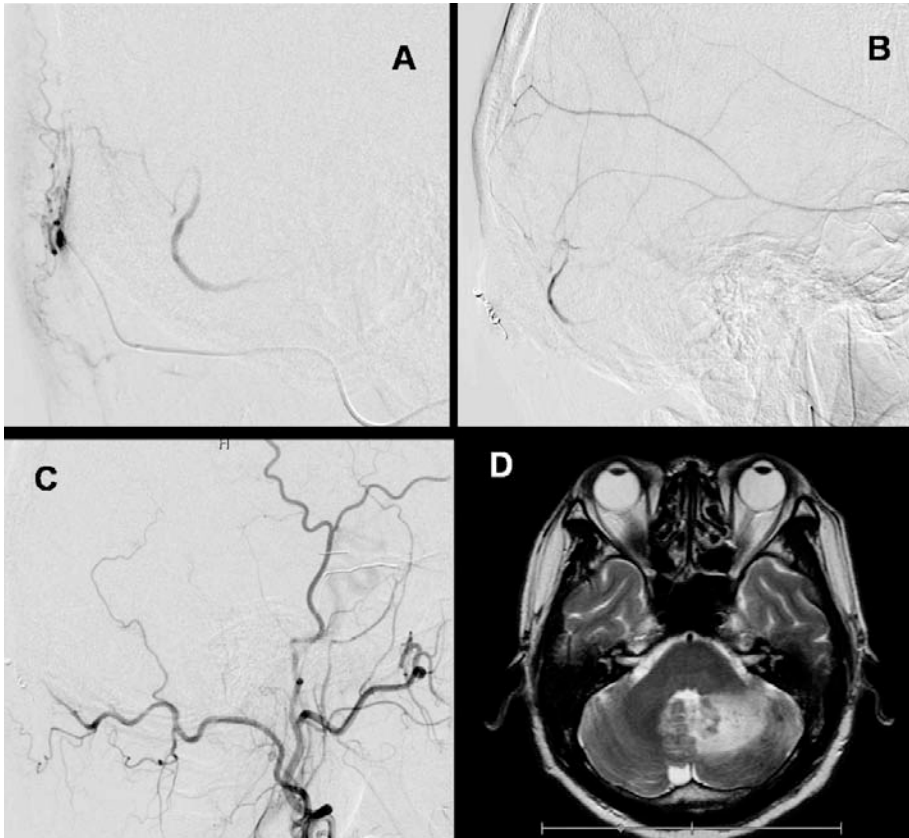


Fig.4 A: Recurrence from distal branch of left occipital artery before 2nd embolization. B: Left middle meningeal artery angiogram showing remaining shunt. C: Postoperative left external carotid angiogram. D: Follow-up MR T2 weighted image showing decreased swelling of left cerebellum.

部に合流する前にシャント部が存在し、その下流が閉塞しているために、逆流して小脳半球がうっ滞したと考えられる。Djindjian Type III, Cognard Type IIIに区分される。Cognardら³⁾によると、Type IIIは258例中、25例に認められた。彼らは、Type III・IVは出血のハイリスク群としており、部分的閉塞術では不十分と報告している。また、Chungら²⁾の60例中、Type IIIは12例であった。治療に難渋した症例が多く、中には5回の経動脈的塞栓術後にガンナイフを追加して、ようやく改善した症例もある。治療後の経過はいずれも良好で、完治または改善を得ているが、テント部DAVFで、経テントヘルニアから両側後下小脳動脈領域の脳梗塞を呈したType IVの症例も報告されている。Type III・IV・VのDAVFは、前頭蓋窩や頭蓋冠に多く、静脈性うっ血およびそれに起因する梗塞症状で発症したものは、脊髄や脳幹部に多くみられる^{4,6,9,11)}。これらのメカニズムは、シャント血の正常静脈系への逆流、または流出路閉塞による静脈圧亢進が主体である。MRI像では、病変は局所動脈環流域と一致せず、びまん性にmass effectを呈するものが多い。テント上に静脈性梗塞を合併したDAVFは稀ではあるが報告されている^{5,7)}。しかし、今回我々が経験したような、

小脳半球に病変の主座をおくDAVFの報告は狩猟し得なかった。

本症例は、小脳半球の非特異的なmass effectを呈する病変のため、原発性脳腫瘍、転移性腫瘍、膿瘍、脳塞栓なども鑑別として挙げられた。しかし、病変周囲のflow voidが明らかであり、血管異常または血管に富む病変である可能性が高いと判断されたため、他の検査に優先して血管撮影を行い、確定診断を得た。MRI上で静脈性うっ血病変が、ガドリニウムに造影されるようになると、画像上不可逆性となるといわれており⁴⁾、症状も進行性であったことより早急な根治治療に踏み切った。

本症例の治療に関して、根治的な直達術も検討されたが、まずは侵襲の少ない血管内治療が選択された。DAVFの治療戦略は、可能であれば根治性の高い、経静脈的塞栓術(TVE)が第一選択となるが^{10,12)}、本症例のような、流出血管が低流速の皮質静脈のみの場合は適さないと判断し、TAEを選択した。さらに、本症例の術前血管撮影において、流入血管は多くとも3本と判断されたため、TAEに適していた。塞栓物質に関しては、根治性の高い液体塞栓物質を第一選択とし、マイクロカテーテルをシャント部のできるだけ近くまですすめて注

入する必要がある。本症例では、全ての流入血管は蛇行が強く、シャント部まで到達することは不可能であった。そこで、マイクロカテーテルをウェッジさせるような形で、低濃度のNBCAをシャント部まで穿通させる方法で行った。通常、複数の流入血管をもつDAVFのTAEでは、シャント部まで遠い分枝からの流入血管を近位部閉塞によりブロックしておいた状態で、最終的に最も到達しやすい流入血管からシャント部を狙うのが治療戦略である¹²⁾。本例では、後硬膜動脈からの枝が最もシャント部を明確に表していたので、最初に後頭動脈からの枝をはらってから後硬膜動脈で仕上げた。ただし、NBCAは瘻孔部を通過して静脈側までは達していなかったため、すぐにリクルート経路が発達し、再発したと考えられた。部分的塞栓では、出血の危険性は残り、浮腫性病変の改善も遅延すると判断したため、早急に2回目の治療を行った。今後再発した場合は、開頭術も考えている。

結 語

小脳の静脈性うっ血症状で発症した、Cognard Type IIIのDAVFについて報告した。NBCAを用いた経動脈的塞栓術は瘻孔の閉塞に有用であり、速やかに症状改善が得られた。この疾患は、部分的塞栓では出血の危険が残るため、不完全治療または再発時には、観血的な根治術も考慮すべきである。

文 献

- 1) Awad IA, Little JR, Akarawi WP, et al: Intracranial dural arteriovenous malformations: factors predisposing to an aggressive neurological course. *J Neurosurg* 72:839-850, 1990.
- 2) Chung SJ, Kim JS, Kim JC, et al: Intracranial dural

- arteriovenous fistulas: analysis of 60 patients. *Cerebrovasc Dis* 13:79-88, 2002.
- 3) Cognard C, Gobin YP, Pierot L, et al: Cerebral dural arteriovenous fistulas: clinical and angiographic correlation with a revised classification of venous drainage. *Radiology* 194:671-680, 1995.
- 4) Kai Y, Hamada J, Morioka M, et al: Brain stem venous congestion due to dural arteriovenous fistulas of the cavernous sinus. *Acta Neurochir (Wien)* 146:1107-1112, 2004.
- 5) Kuncz A, Voros E, Varadi P, et al: Venous cerebral infarction due to simultaneous occurrence of dural arteriovenous fistula and developmental venous anomaly. *Acta Neurochir (Wien)* 143:1183-1184, 2001.
- 6) Li J, Ezura M, Takahashi A, et al: Intracranial dural arteriovenous fistula with venous reflux to the brainstem and spinal cord mimicking brainstem infarction: Case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 44:24-28, 2004.
- 7) Lo CP, Chen CY, Hsueh CJ, et al: Diffusion-weighted magnetic resonance imaging of spontaneous venous infarction and cortical hemorrhage complicating dural arteriovenous fistula. *J Neuroimaging* 16:69-72, 2006.
- 8) Newton TH, Cronqvist S: Involvement of dural arteries in intracranial arteriovenous malformations. *Radiology* 93:1071-1078, 1969.
- 9) 大石英則, 堀中直明, 清水 崇, 他: 脳幹梗塞で発症した頭蓋内硬膜動静脈瘻の1例. *No Shinkei Geka* 33: 1095-1099, 2005.
- 10) Roy D, Raymond J: The role of transvenous embolization in the treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas. *Neurosurgery* 40:1133-1141, 1997.
- 11) Satoh M, Kuriyama M, Fujiwara T, et al: Brain stem ischemia from intracranial dural arteriovenous fistula: Case report. *Surg Neurol* 64:341-345, 2005.
- 12) 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, 193-212.

要 旨

JNET 1:26-30, 2007

56歳男性. 1ヶ月前からの全身の浮遊感にて発症した. 頭部CT・MRIにて, 左小脳半球の局所的な浮腫とmass effectを認めた. 診断目的の脳血管撮影では, 左後頭動脈と左後硬膜動脈より入る, Djindjian Type III, Cognard Type IIIの硬膜動静脈瘻(DAVF)を認めた. 流出静脈は正中の小脳鎌付近の左下小脳半球静脈で, 静脈洞交会との交通はなく, 左側小脳半球に強い静脈うっ滞を認めた. N-butyl cyanoacrylate (NBCA)を用いて経動脈的塞栓術を行い, 完全閉塞を得た. 静脈うっ血を伴う静脈洞を介さない, single cortical drainage DAVFについて, 文献的考察を加えて報告する.