

症候性脳静脈灌流障害を呈する硬膜動静脈瘻に対する血管内治療

宮地 茂, 泉 孝嗣, 大島 共貴, 鶴見 有史
細島 理, 松原 功明, 錦古里武志, 若林 俊彦

Endovascular Treatment for Dural Arteriovenous Fistula with Symptomatic Venous Outflow Impairment

Shigeru MIYACHI, M.D., Takashi IZUMI, M.D., Tomotaka OHSHIMA, M.D.,
Arihito TSURUMI, M.D., Osamu HOSOSHIMA, M.D., Noriaki MATSUBARA, M.D.,
Takeshi KINKORI, M.D., and Toshihiko WAKABAYASHI, M.D.

Department of Neurosurgery, Nagoya University Graduate School of Medicine, Nagoya, Aichi, Japan

Summary: Dural arteriovenous fistula (DAVF) with sinus occlusion and cortical reflux often presents with neurological symptoms. These symptoms are due to venous congestion and hypertension that often result in intracranial hemorrhage and venous infarction. We investigate 25 patients (9% of all our DAVF cases) including 19 males and 6 females aged from 46 to 79 years old with brain dysfunction due to marked venous reflux from DAVF. The lesions were located in the lateral sinus in 17 patients, the superior sagittal sinus in 2, the tentorial sinus in 3, and other locations in 3 cases. Clinical manifestations included hemorrhage with various neurological deficits in 10 patients and brain dysfunction due to venous congestion in 15 patients, including 7 with visual disturbances, 5 with cognitive dysfunction or dementia, 4 with convulsions, and 3 with other symptoms.

Twelve patients were treated with transarterial embolization (TAE), 10 with transvenous embolization and 3 with surgical sinus packing. Sinoplasty with balloon catheter was performed in 3 patients. Angiographically, the fistula was totally occluded in 16 patients, almost completely occluded in 7 and only partially occluded in 2. TAE with glue showed a high cure rate (70%). Symptoms improved or recovered in 18 patients. However, symptoms did not change in 3 patients, including 1 with pre-operatively severe neurological deficits and 2 with visual disturbance untreated for a prolonged time or treated palliatively. We found that there were 2 venous reflux patterns to the cortical vein in cases of DAVF. They include reflux to the cortical vein as the only drainage route from the isolated sinus, and retrograde flow through the sagittal sinus due to the bilateral occlusion of lateral sinus resulting in pancerebral vascular congestion. The former represented the aggressive type and showed focal venous congestion and required early occlusion of shunt flow. The latter showed more chronic progression with cognitive or psychological dysfunction requiring reconstruction of the drainage pathway as well as shunt

Key words:

- dural arteriovenous fistula
- venous outflow
- congestion
- hemorrhage
- embolization

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 38: 243-249, 2010

occlusion. These treatments should be performed as early as possible to avoid irreversible damage to the brain.

Although treatment strategy should be selected according to the location of each DAVF and its possible approach, transarterial target embolization using liquid embolic materials is promising due to its high cure rate.

Table 1 Case summary (treatment strategy and angiographic results by location)

	Treatment strategy				Angiographic results		
	TAE*	TVE	TVE + sinoplasty	surgical sinus packing	total occlusion	subtotal occlusion	partial occlusion
transvers sigmoid	6	7	2	2	11	5	1
tentorial	3	0	0	0	2	1	0
superior sagittal	2	0	0	0	1	1	0
cavernous	0	0	0	1	1	0	0
multiple	1	0	1	0	1	0	1

TAE: transarterial embolization, TVE: transvenous embolization
 *TAE was combined in 3 cases to expect the booster effect.

はじめに

硬膜動静脈瘻(DAVF)は、静脈洞閉塞を伴うことが多く、シャント血が脳表静脈に逆流して正常灌流を障害することがある。特に横静脈洞部 DAVF においては、シャント部の遠位近位ともに静脈洞が閉塞し全部のシャント血が皮質へ向かう状態(isolated sinus)になると、静脈うっ滞による静脈性梗塞や出血を呈することが多い⁴⁾⁹⁾¹³⁾。一方、両側の S 状静脈洞や内頸静脈が閉塞している場合には、大脳全体の静脈灌流障害をきたし、高次脳機能障害を起こす。これらの流出路閉塞を伴う症例では、症状が急激かつ進行性であることが多く aggressive DAVF として早急な治療を要するが²⁾⁴⁾⁷⁾¹⁰⁾¹³⁾¹⁴⁾、経静脈的アクセスルートが閉ざされているため治療に難渋することが多い。本稿ではわれわれが経験した、著明な頭蓋内逆流とそれに伴う脳機能障害を呈した 25 症例の結果を提示し、重症例の治療戦略について文献的考察を加えた。

対 象

対象は 1997 年 1 月から 2008 年 12 月までの間に治療を行った硬膜動静脈瘻 227 例のうち、高度な脳表静脈逆流に起因する脳機能障害を呈した 25 症例である。脳表静脈逆流を伴うが順行性の流出路ももつ例(いわゆる Cognard type³⁾ IIb)または逆流があるが脳機能障害をまったく呈していない例は除外した。内訳は男性 19 例、女性 6 例で、年齢は 46-79 歳(平均 65.4 歳)である。DAVF の部位は横・S 状静脈洞(TS-SS) 17 例、上矢状静脈洞(SSS) 2 例、テン

Table 2 Clinical outcome*

Clinical symptoms* associated with venous congestion	Clinical results**		
	cure	improvement	no change
visual disturbance	3	1	2
dementia, cognitive dysfunction	2	3	0
aphasia	0	1	0
depression	1	1	0
convulsion	2	2	0
consciousness disturbance	0	1	1
vertigo	1	0	0

*except for 3 cases with the sequela due to the subcortical hematoma

**Total number of each item is not correlated with case numbers because multiple symptoms are often observed in 1 case.

ト部 3 例、多発性(横静脈洞部と上矢状洞部) 2 例、海綿静脈洞部(CS) 1 例であった。発症形式は症候性の出血が 10 例、静脈うっ滞による症状が 15 例である。出血例は全例横静脈洞部 DAVF で、静脈うっ滞に伴う皮質下出血である。静脈うっ滞による脳機能不全としては、重複も含めて視力・視野障害が 7 例、痴呆、認知障害などの高次脳機能障害および精神症状が 5 例で、4 例は痙攣にて発症した。抑うつなどの精神機能障害や意識障害が各 2 例、平衡機能障害が 1 例で認められた。出血による症状はすべて側頭または頭頂葉の皮質下出血に伴い、意識障害が 1 例、視野障害が 3 例、認知障害が 4 例、失語が 3 例で認められた。

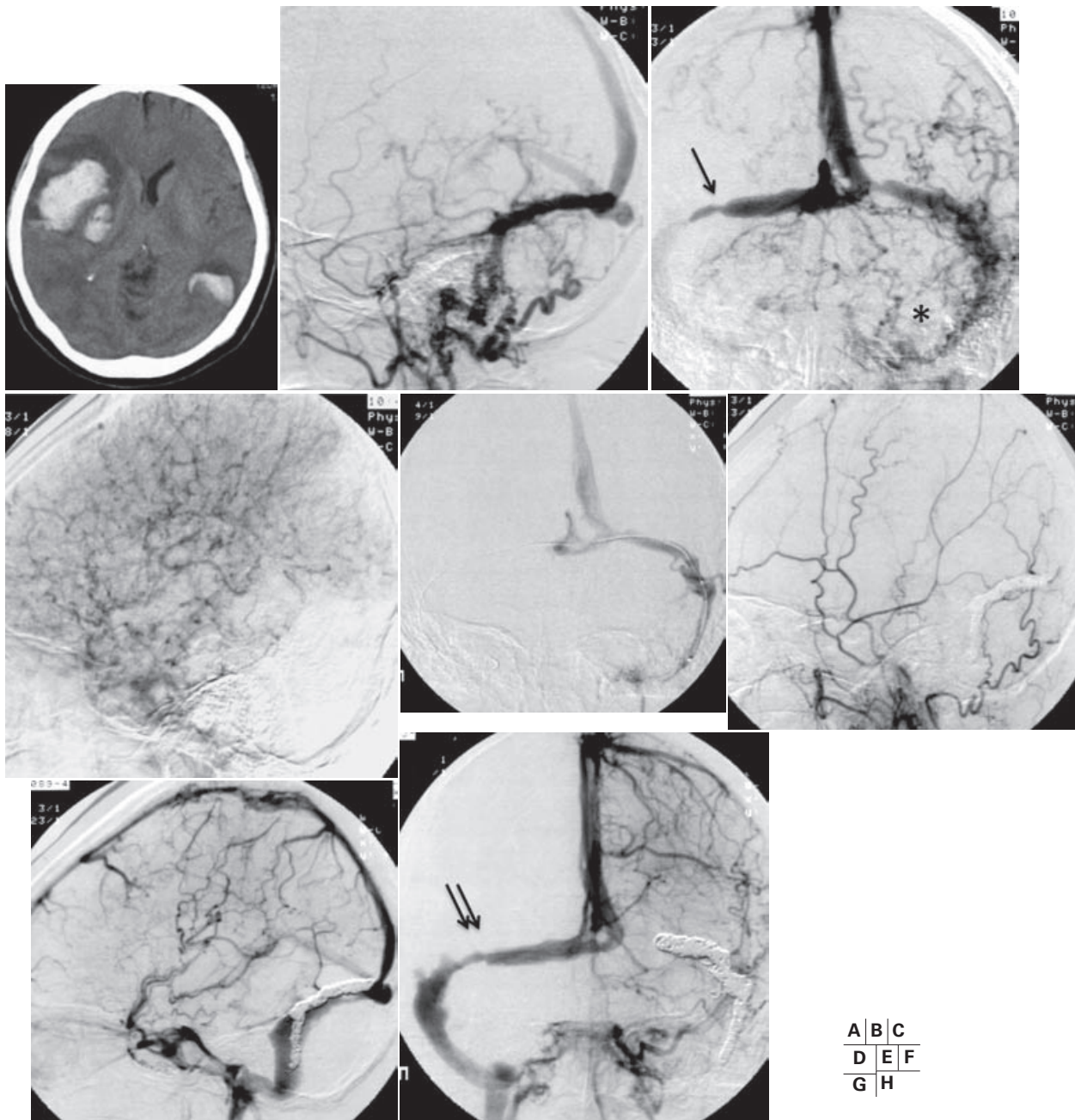


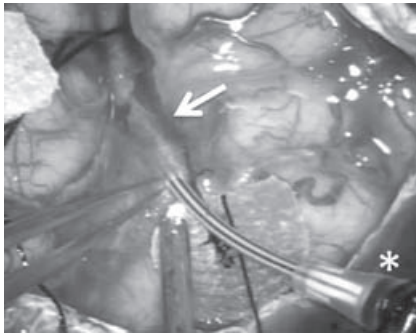
Fig. 1 A case of DAVF at transvers and sigmoid sinus (TS-SS) with impaired drainage route.

CT scan shows multiple subcortical hematoma (A) and external angiogram revealed multiple shunt at the left TS-SS with remarkable reflux to SSS due to the distal end of left SS (asterisk) and severe stenosis of right TS (arrow) (B, C) and marked congestion of cortical venous outflow (D). Transvenous coil packing of left TS-SS via right TS (E) resulted in the total occlusion of the shunt (F). Sinoplasty of right TS (double arrow) resulted in the recovery of normal venous drainage (G, H).

治療および結果

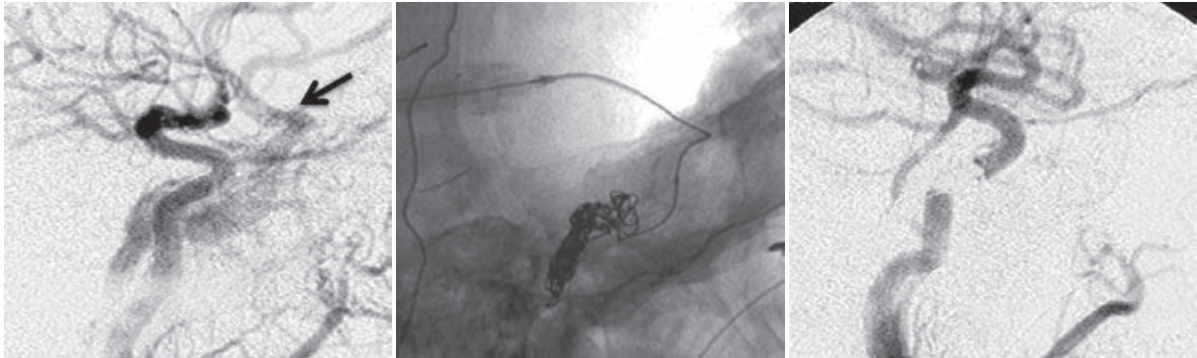
治療は発症後または来院後可及的早期(1カ月以内)に行われた。Table 1に summary を示す。治療法としては、

経動脈的塞栓術(TAE) 12例, 経静脈的塞栓術(TVE) 10例のうち3例でバルーンによる閉塞静脈洞の再開通と拡張(sinoplasty)を行った(症例1)。3例が開頭手技を併用した経皮的 catheterization により sinus packing を行った



A
B|C|D

Fig. 2 A case of DAVF at the cavernous sinus (CS) refluxing into superficial temporal vein (arrow) from both dural feeders of carotid artery (A). Under the right frontotemporal craniotomy Sylvian vein was exposed (B). A microcatheter was inserted into the affected sinus through the needle indwelled in the Sylvian vein (B) and coils were placed (C). Postoperative angiogram showed complete occlusion of DAVF (D).



(surgical sinus packing). TS-SS DAVF の 2 例および SSS DAVF の 1 例では sinus 直上にて穿頭後、直接 sinus を穿刺して sinus packing を行った。また 1 例上矢状洞上に穿頭穿刺して罹患静脈洞へアプローチした。sphenoparietal sinus のみに逆流する CS 部の DAVF には、前頭側頭小開頭を行い、Sylvian vein を直接穿刺してシャント部へアプローチして TVE を行った (症例 2)。TS-SS DAVF の 6 例および多発性 (TS-SS+SSS) のうち、TS-SS 部については、閉塞した sinus を penetration して、病変となる静脈洞へアプローチしてコイル塞栓術を行った。TS-SS 部の 5 例とテント部の 3 例は glue を用いた TAE にて治療し (症例 3, 4)、TS-SS 部の 1 例と多発性の 1 例は particle とコイルによる栄養動脈閉塞に終わった。

結果として、完全閉塞は 16 例、一部のシャントが残る不完全閉塞が 7 例、姑息的閉塞のみの部分閉塞が 2 例であった。塞栓術別では TAE による完全閉塞は glue では 10 例中 7 例と高率であったのに対し、particle+コイルによる TAE の 2 例は部分閉塞に終わった。さまざまなアプローチによる TVE の完全閉塞率は 13 例中 9 例であった。症候の消失または改善は 18 例で得られた。症候別の改善度は **Table 2** に示す。術前より重度の神経症状を呈した 1 例では改善が得られず、部分閉塞に終わった 1 例と比較的長い病歴を持つ 1 例では視力・視野障害の改善が得られなかった。またもともとある皮質下出血による後遺症としての神経症状は改善が乏しかった。また合併症として、sinus packing 不十分であった、isolated TS-SS DAF の 1

例で、術後症候性の皮質下出血を認め、開頭術を要した。

代表症例

〈症例 1〉 (Fig. 1)

64 歳女性。痙攣にて発症、近医にて意識障害悪化、左片麻痺となり、半昏睡状態にて搬送された。CT にて両側大脳半球に多発性の皮質下出血を認め、脳血管撮影にて左 TS-SS 部に DAVF を認めた。左 SS の尾側が閉塞し、右 TS に狭窄があるため、シャント血は皮質静脈または SSS や直静脈洞へ逆流し、著明な大脳半球の静脈灌流障害を呈していた (Lalwani grade⁸⁾ III)。右 TS 経由で左 SS へアプローチし、罹患静脈洞をコイルにて packing した。その後狭窄の強い右 TS に対しバルーンカテーテルを用いた sinoplasty を行った。術後シャントの消失と正常の静脈灌流が得られ、高次脳機能障害を残すも意識障害は改善した。

〈症例 2〉 (Fig. 2)

58 歳男性。頭痛と視力障害にて発症。MRA にて血管奇形が疑われ、脳血管撮影にて頭蓋内逆流が唯一の drainage route である aggressive type の CS DAVF を認めた。シャント血は Sylvian および deep Sylvian vein を介して、皮質静脈および深部静脈系へ drainage されていた。下垂体静脈洞 (IPS) が閉塞し、経皮的経静脈的アプローチが困難であったため、前頭側頭開頭にて Sylvian vein を露出して留置針を刺入し、それを介してマイクロカテーテルを罹患静脈洞へ誘導し、コイルにて packing を行った。治療

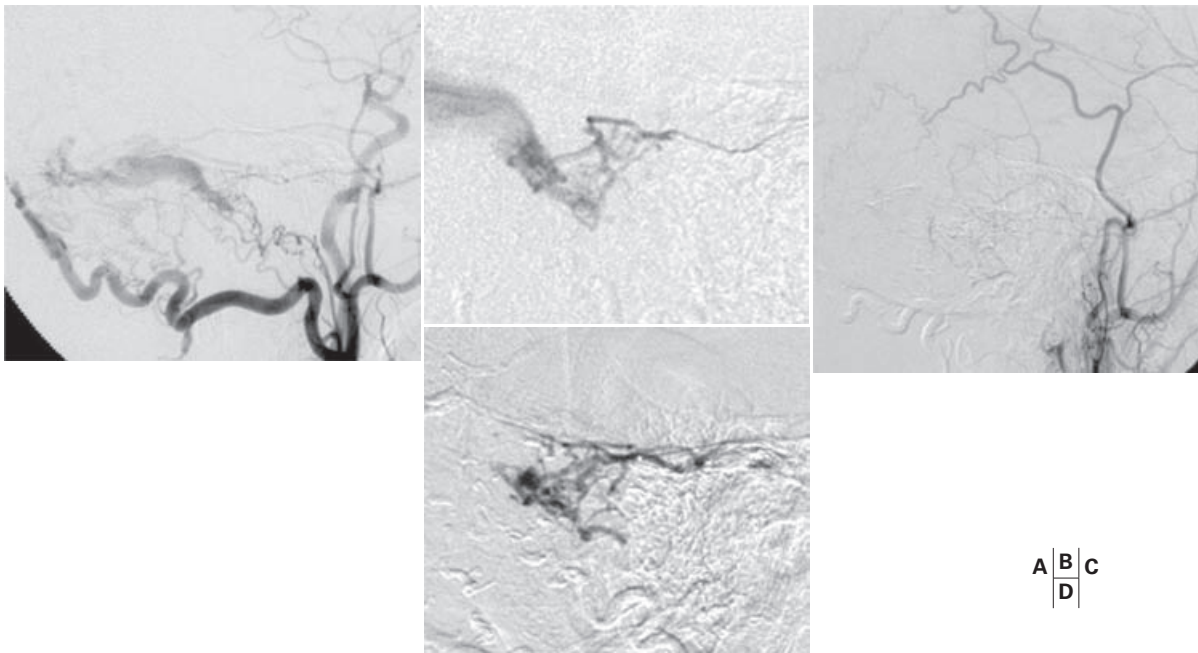


Fig. 3 A case of aggressive DAVF at transversus sinus (TS) with isolated sinus presenting headache and convulsion (A). After the embolization of dural feeders from both external carotid artery and right vertebral artery, lastly a microcatheter was placed into the most distal part of right middle meningeal artery (B) and it was embolized with diluted glue to penetrate the shunt (C). Postoperative angiogram showed complete occlusion of DAVF (D).

は手術室にてポータブル DSA 装置の透視下に行った。術後シャントは消失し、症状も改善した。

〈症例 3〉 (Fig. 3)

69 歳男性。頭痛とけいれんにて発症。血管撮影にて左 TS 部に isolated sinus で著明な皮質静脈逆流を認める DAVF が認められた。栄養動脈は左右の後頭動脈のほか、左の中硬膜動脈、上行咽頭動脈、後耳介動脈、後硬膜動脈が関与していた。まず対側および左の硬膜動脈を低濃度 (20%) の glue (NBCA+リピオドール溶液) にて塞栓した。最後に残した中硬膜動脈から 20% の glue を shunt point まで penetrate するように注入し、完全閉塞を得た。

〈症例 4〉 (Fig. 4)

56 歳男性。頭痛と進行性の小脳失調、構語障害にて発症。MRI では左小脳半球の著明な浮腫がみられ、血管撮影にてきわめて low flow の DAVF を小脳テント正中後端に認めた。シャント血は小脳表面の静脈へ drainage するが washout が不良であった。後頭動脈と後硬膜動脈からの feeder を低濃度 glue にて塞栓し完全閉塞を得た。術後 3 カ月で小脳浮腫は改善し、神経学的症候も消失した。

考 察

硬膜動静脈瘻がその進行過程で静脈洞が閉塞を伴うことはよく知られている¹²⁾。このうちすべての sinus からの

シャント血の導出路が閉ざされ皮質静脈へ逆流する type (isolated sinus) においても、involve された皮質静脈が静脈間の吻合をもち、他の静脈洞または導出静脈を介して頭蓋外へシャント血をスムーズに流出できる場合には比較的症状は生じにくい。吻合がないか、または狭窄や閉塞が生じた場合には、脳実質内での微細吻合を介して深部静脈系や他の導出系に向かうことになり、結果として局所に高度の静脈圧亢進が生じ、静脈性浮腫やそれに伴う出血を引き起こして症候性となる。もう 1 つの症状出現のメカニズムは、前述の isolated sinus ではなく、導出経路が TS-SS に依存している状態、すなわち静脈吻合による海綿静脈洞や導出静脈への経路が低形成の状態、両側の TS-SS が閉塞した TS-SS 部の DAVF の場合である。シャント血は直静脈を介して深部静脈系に強いうっ血をもたらすか、上矢状静脈洞を逆流して両側の皮質静脈へ逆流し、皮質全体の静脈灌流障害を起こす²⁾ (Table 3)。われわれの症例のうちの精神障害をきたした 2 例と意識障害の 1 例、視力障害の 2 例はこのタイプであった。特に視力障害の原因は、著明な頭蓋内圧亢進を伴う高度のうっ血乳頭であった。

出血発症例はもちろん、進行性かつ重篤な神経症状を伴う aggressive DAVF においては早急な治療が必要なことは当然であり⁷⁾¹⁰⁾、治療の遅れは、神経症状回復遅延や永続性障害の後遺につながる¹⁵⁾。われわれの例においても 3

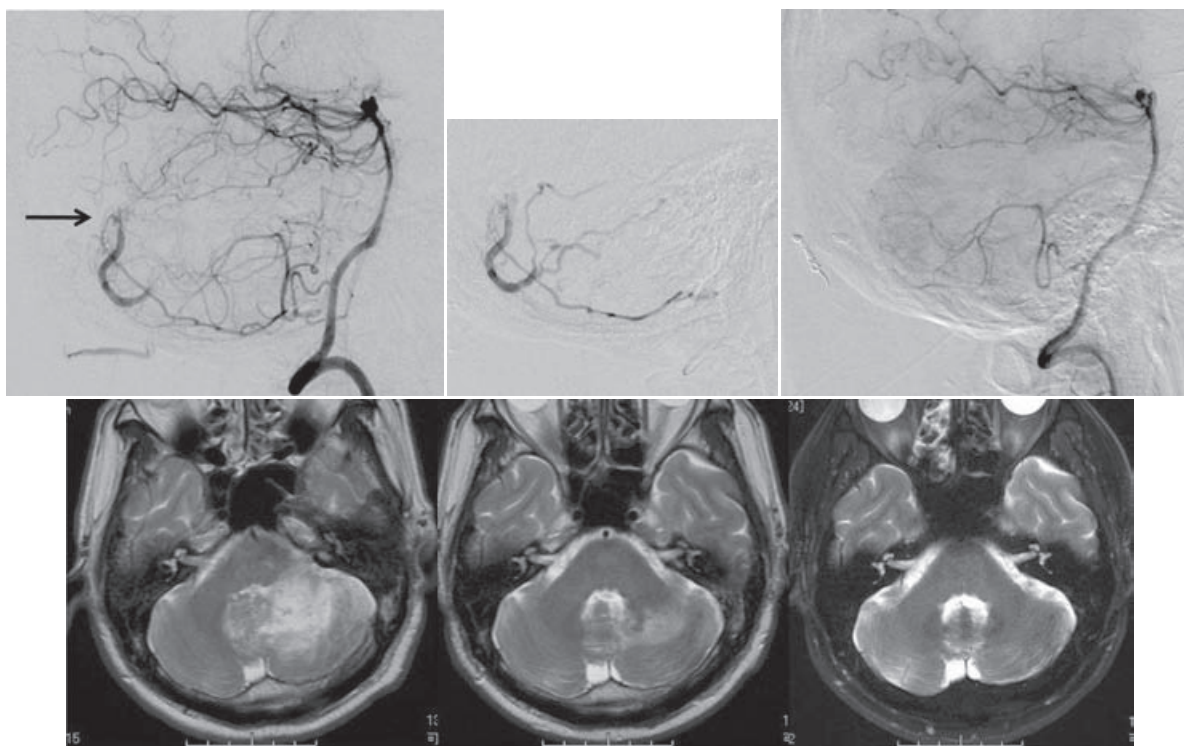


Fig. 4 A case of focal cerebellar edema due to the tentorial DAVF with impaired outflow presenting ataxia (A). Feeders from occipital artery and posterior meningeal artery (B) were embolized with diluted glue. Postoperative angiogram showed complete occlusion of the fistula (C). MRI revealed marked improvement of the edema. (D; before (left), 1 month after (center) and 6 months after (right) the embolization).

A | B | C
D

Table 3 Mechanism of symptomatic development due to the venous hypertension with dural arteriovenous fistula

	Type with affected sinus	Type without affected sinus
Local cranial nerve palsy due to the venous hypertension ¹	CS (III – VI) ACC (XII)	—
Neurological symptoms due to the reflux to the normal venous system ²	TS, SSS (cerebral dysfunction) CS (optical dysfunction ³)	Spine, CCJ
Hemorrhage due to the drainage impairment	TS	Ethmoidal ⁴ Tentorial ⁴ (Spine, Middle cranial fossa)

1: mechanical compression or perfusion failure for the neuroallimentation

2: venous infarction due to the local venous congestion or whole cerebral (cognitive, psychological) dysfunction and intracranial hypertension

3: glaucoma with extraocular symptoms and occasional brain stem dysfunction with the subtentorial reflux

4: frequently due to the rupture of varix

abbreviations: CS; cavernous sinus, ACC; anterior condylar confluence, TS; transverse sinus, SSS; superior sagittal sinus, CCJ; craniocervical junction

カ月以上の病歴を持つ例における改善度は低かった。しかしながら、アプローチルートの閉ざされた罹患静脈洞への到達は一般的に困難であり、経静脈的に硬いガイドワイヤを用いて閉塞部を穿通させることを第一選択とするが、不可能な場合には罹患静脈洞の直上またはその頭蓋内

導出への遠位側静脈を直接穿刺してアプローチする surgical sinus packingを選択する。この方法は、侵襲性は高いが根治率も高い。われわれは本症例群には含まれないが、無症候性で経静脈的アプローチ困難な TS-SS DAVF 3例も含めた7例に適用したが、全例根治が得られた。た

だし、1例で穿刺に伴う硬膜下血腫を生じて開頭術を要しており、手術室での実施が望ましい。

一方、罹患静脈洞を持たない DAVF では、glue を用いた根治的 TAE が必要である。皮質静脈逆流による出血を高率に発生する前頭蓋底(嗅窩)部や一部のテント部 DAVF においては、開頭によるシャント閉塞が行われることが多い⁹⁾¹⁰⁾。テント部の根治的 TAE としては、主栄養血管であるテント動脈への catheterization が必要であるが、この動脈の分岐する meningohypophyseal trunk の起始部はきわめて tortuous であり、シャント部までカテーテルを挿入することは困難なため、起始部から低濃度の glue を慎重に注入してなるべくシャント付近まで到達させる。この内頸動脈硬膜枝以外に、副中硬膜動脈などからの栄養動脈がある場合には、なるべくシャント近くまで catheterization したうえで、drainer まで penetrate するように glue を注入して根治をはかる。この戦略的な TAE は isolated TS DAVF においても応用できる。方法論は各テキスト⁹⁾¹⁰⁾に譲るが、一般に内頸、椎骨動脈の硬膜枝と外頸動脈(後頭動脈、後耳介動脈など)からの栄養枝を、近位側閉塞でよいので閉塞しておいた状態で、最もシャント部位へアプローチしやすい最後に残った中硬膜動脈(いわゆる「勝負血管」)から、カテーテルを wedge させた状態で drainer 側まで glue を押し進める。われわれは、今回 glue による TAE を行った TS-SS DAVF 5 例のほか、無症候性の 2 例も含めて、この方法で 6 例に完全閉塞が得られた。

isolated sinus の DAVF における sinus packing では、危険な drainage のみ残さないようにする必要がある。TVE においては feeder からの流入がとめられていないため、十分な血管構築の理解のうえ、危険な流出路の塞栓を最も重要視すべきであり¹¹⁾、最初の画像上認められない導出路が出現して遺残するとわれわれの症例のように術後出血の原因となる。一方、TAE については、従来の栄養血管の近位部から固体塞栓物質を乱射する方法では、近位閉塞に終わるうえに再開通も必至であった²⁾が、上述の液体塞栓物質による段階的、戦略的 TAE は根治性が高く、われわれも 86% の例で完全閉塞が得られた。すでに欧米では Onyx を用いた根治的 TAE の報告が出てきており¹⁾⁵⁾⁶⁾、isolated sinus を有する DAVF について血管内治療方針の変化が予想される。

まとめ

症候性の頭蓋内逆流を呈する DAVF の治療は早急かつ効果的に行う必要がある。経静脈的または直接穿刺による sinus packing と戦略的 TAE が症例に応じて選択される

が、侵襲性の問題とデバイス、治療技術などの向上により後者についての需要が増加する可能性がある。

文 献

- 1) Chew J, Weill A, Guilbert F, *et al*: Arterial Onyx embolisation of intracranial DAVFs with cortical venous drainage. *Can J Neurol Sci* 36: 168-175, 2009
- 2) Cognard C, Casasco A, Toevi M, *et al*: Dural arteriovenous fistulas as a cause of intracranial hypertension due to impairment of cranial venous outflow. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 65: 308-316, 1998
- 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) Cognard C, Houdart E, Casasco A, *et al*: Long-term changes in intracranial dural arteriovenous fistulae leading to worsening in the type of venous drainage. *Neuroradiology* 39: 59-66, 1997
- 5) Cognard C, Januel AC, Silva NA Jr, *et al*: Endovascular treatment of intracranial dural arteriovenous fistulas with cortical venous drainage: new management using Onyx. *AJNR Am J Neuroradiol* 29: 235-241, 2008
- 6) Huang Q, Xu Y, Hong B, *et al*: Use of onyx in the management of tentorial dural arteriovenous fistulae. *Neurosurgery* 65: 287-292, 2009
- 7) 桑山直也, 久保道也, 山本博道, ほか: Aggressive Dural Arteriovenous Fistula の血行動態と治療. *脳卒中の外科* 31: 247-252, 2003
- 8) Lalwani AK, Dowd CF, Halbach VV: Grading venous restrictive disease in patients with dural arteriovenous fistulas of the transverse/sigmoid sinus. *J Neurosurg* 79: 11-15, 1993
- 9) 宮地 茂: 脳硬膜動静脈瘻の血管内治療. *脳と神経* 60: 907-914, 2008
- 10) 宮地 茂: その他の頭蓋内頭蓋底部硬膜動静脈瘻. 兵頭明夫, 坂井信幸, 宮地 茂, 瓢子敏夫, 小宮山雅樹, 松丸祐司, 根本 繁(編): 脳神経血管内治療のすべて—最新症例から学ぶ—, にゅーろん社, 東京, 2007, pp139-146
- 11) 宮地 茂, 岡本 剛, 根来 真, ほか: 後頭蓋窩硬膜動静脈瘻の血管内手術に必要な血管解剖. *脳神経外科* 28: 951-962, 2000
- 12) Satomi J, Satoh K, Matsubara S, *et al*: Angiographic changes in venous drainage of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae after palliative transarterial embolization or observational management: a proposed stage classification. *Neurosurgery* 56: 494-502, 2005
- 13) van Dijk JM, terBrugge KG, Willinsky RA, *et al*: Clinical course of cranial dural arteriovenous fistulas with long-term persistent cortical venous reflux. *Stroke* 33: 1233-1236, 2002
- 14) van Rooij WJ, Sluzewski M, Beute GN, *et al*: Dural arteriovenous fistulas with cortical venous drainage: incidence, clinical presentation, and treatment. *AJNR Am J Neuroradiol* 28: 651-655, 2007
- 15) Wong GKC, Poon WS, Yu CH, *et al*: Transvenous embolization for dural transvenous sinus fistulas with occluded sigmoid sinus. *Acta Neurochir (Wien)* 149: 929-936, 2007