

コイル塞栓術を施行したAnterior Condylar Confluence 硬膜動静脈瘻の一例

遠藤英樹、瓢子敏夫、片岡丈人、早瀬一幸、荻野達也、中村博彦
中村記念病院 脳神経外科、財団法人北海道脳神経疾患研究所

Endovascular Coil Embolization for Dural Arteriovenous Fistula of Anterior Condylar Confluence: A Case Report

Hideki ENDO, M.D., Toshio HYOGO, M.D., Taketo KATAOKA, M.D., Kazuyuki HAYASE, M.D., Tatsuya OGINO, M.D., and Hirohiko NAKAMURA, M.D.

Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital and Hokkaido Brain Research Foundation, Sapporo, Japan

Abstract

We report a case of endovascular coil embolization for dural arteriovenous fistula (DAVF) of anterior condylar confluence (ACC).

A 43-year-old man with hyperlipidemia was admitted with the left pulsatile tinnitus. Angiograms revealed DAVF at the ACC. The arterial supply was the left ascending pharyngeal artery, and the main drainage was vertebral venous plexus. The transvenous coil embolization was performed. The shunt flow decreased gradually, but not disappeared completely. During the procedure, we changed treatment strategy from venous side to the transarterial embolization. The shunt flow was disappeared except draining into vertebral venous plexus, and the patient's symptoms improved.

ACC is venous confluence of 3-5 mm near the jugular bulb. ACC DAVF is extremely rare. In late years, ACC attracts its attention as craniocervical venous system is understood. ACC DAVF has been assumed to be marginal sinus DAVF or hypoglossal canal DAVF. Surrounding anatomy of ACC venous connection, arterial supply, drainer, and cranial nerve is important to make a treatment strategy.

Key words: dural arteriovenous fistula, anterior condylar confluence, coil embolization

はじめに

Anterior condylar confluence硬膜動静脈瘻 (ACC-DAVF) は頸静脈球部や舌下神経管部の近傍に生じる稀なDAVFである。従来、marginal sinus DAVF¹⁾ やhypoglossal canal DAVF^{2,3)} とされてきた疾患であるが、近年、ACC-DAVFとして注目を集めている^{4,6)}。ACC周辺は多くの静脈系との交通があり、draining veinが複雑であること、また、舌下神経の走行も近く、治療による影響もあることから、周囲の解剖を理解し、塞栓術を行うことが重要である。今回、我々はコイル塞栓術を施行したACC-DAVFの一例を経験したので報告する。

症例: 43歳、男性

主訴: 左拍動性耳鳴

現病歴: 8年前から左拍動性耳鳴を自覚していた。一時軽快していたが、増悪してきたため、当院を受診した。MRAでDAVFを疑われ入院となった。左舌をよく噛むことがあるという。

既往歴: 高コレステロール血症 (内服加療)、外傷歴なし
入院時現症: 左拍動性耳鳴あり。舌下神経麻痺は他覚的には認められなかった。その他、眼症状など、明らかな神経症状を認めなかった。

画像所見

MRA: 左頸静脈球部付近に異常血管影を認めた (Fig. 1)。

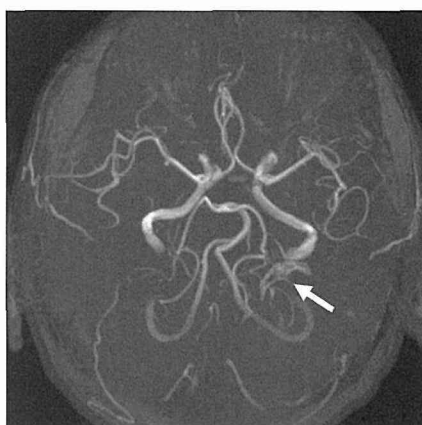


Fig. 1 MRA
左頸静脈球部付近に異常血管影を認めた (矢印)。

脳血管撮影: 左総頸動脈撮影では左上行咽頭動脈 (ascending pharyngeal artery: APA) が太く発達しており、同血管をfeederとして左ACCにshunt pointを有するDAVFを認めた (Fig. 2)。左APA選択造影を施行すると、

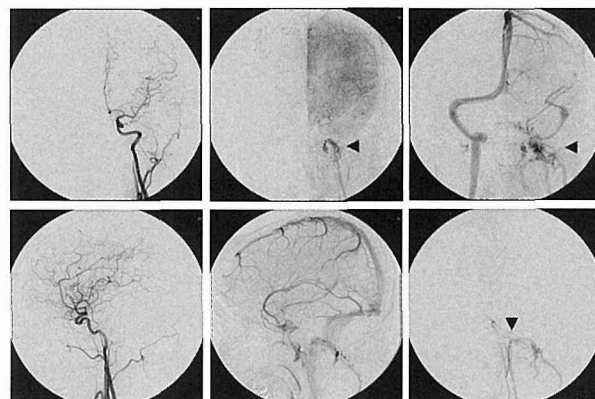


Fig. 2 左総頸動脈造影
上段: 正面像、下段: 側面像
左上行咽頭動脈をfeederとしてanterior condylar confluenceにshunt pointを有する硬膜動静脈瘻を認めた (▲)。

ACCからlateral condylar veinを介してvertebral venous plexusへの放射状の流出を認めた。Anterior condylar vein, internal jugular vein, 頸静脈球部への流出も見られた。また、ACCからTrolard's inferior petrooccipital veinを逆流し、海綿静脈洞へ達し、下錐体静脈洞 (inferior petrosal sinus: IPS) へ順行性に還流するflowを認めた (Fig. 3)。Microcatheterも用いて血管造影を行ったが、

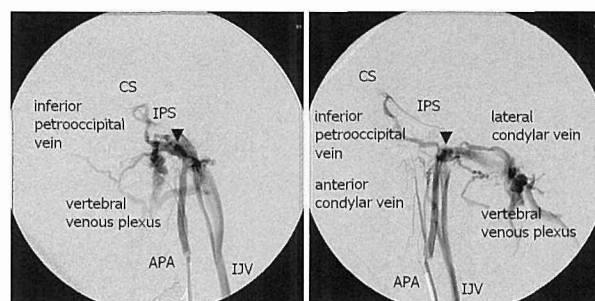


Fig. 3 左上行咽頭動脈選択造影
左図: 正面像 (LAO 8°, CRAN 31°)、右図: 側面像 (LAO 65°, CRAN 13°)
anterior condylar confluenceを▲で示す。
APA: ascending pharyngeal artery, CS: cavernous sinus, IJV: internal jugular vein, IPS: inferior petrosal sinus

対側を含め、その他の外頸動脈分枝や内頸動脈、椎骨動脈からのfeederは認められなかった。

血管内治療：症候性病変であり、血管内治療を施行することにした。なお、本治療を施行するにあたり、患者、家人へは十分な説明を行い、同意を得た。その根治を目指して、全身麻酔下に血管内治療（経静脈的コイル塞栓術）を行った。右大腿静脈、右大腿動脈にそれぞれ5Fシースを挿入した。ヘパリン6,000単位を投与し、activated clotting timeを122秒から280秒まで上昇させた。その後はヘパリン1,000単位を1時間毎に投与した。右大腿動脈より4Fカテーテルを左APAに留置し、治療中の血管造影を行った。5F Envoy MPD（Cordis, Johnson and Johnson Medical, Miami Lakes, Fla, USA）をguiding catheterとして用い、右大腿静脈アプローチで左内頸静脈に留置した。Echelon 10 90（ev3, Irvine, Calif, USA）とSynchro 14（Boston Scientific, Fremont, Calif, USA）でACCへ到達し、コイル塞栓術を行った。① Cashmere 14 4mm×8cm（Micrus corporation, San Jose, Calif, USA）でframingを行い、順次、塞栓を行った（② Cashmere 14 4mm×8cm, ③ Ultipaq 10 3mm×6cm（Micrus corporation）, ④ Ultipaq 10 3mm×4cm, ⑤ Ultipaq 10 3mm×6cm, ⑥ Ultipaq 10 3mm×6cm, ⑦ Ultipaq 10 3mm×8cm）。シャント量は徐々に減少したが、前方へのflowが残存したまま、後方へのflowが減少してきたため（Fig. 4）、経動脈的塞栓術へ変更した。Echelon 10 STR（ev3）で左APA



Fig. 4 左上行咽頭動脈選択造影（経静脈的塞栓術後、経動脈的塞栓術前）
後方へのflowは減少しているが、Trolard's inferior petrooccipital veinを介する前方へのflowが残存している（▲）。

末梢、シャント近傍に到達し、コイル塞栓を行った（⑧ MicroSphere 10 4mm×7.5cm（Micrus corporation）, ⑨ Ultipaq 10 3mm×8cm, ⑩ Ultipaq 10 2.5mm×8cm, ⑪ Ultipaq 10 2.5mm×8cm, ⑫ Ultipaq 10 2mm×8cm, ⑬ Ultipaq 10 2mm×8cm, ⑭ Ultipaq 10 2mm×8cm）。APAからの直接のシャントは消失したが、APA pharyngeal branchを介してわずかにシャントが残存した。流出路はvertebral venous plexusであり、頭蓋内静脈への逆流は消失した（Fig. 5）。

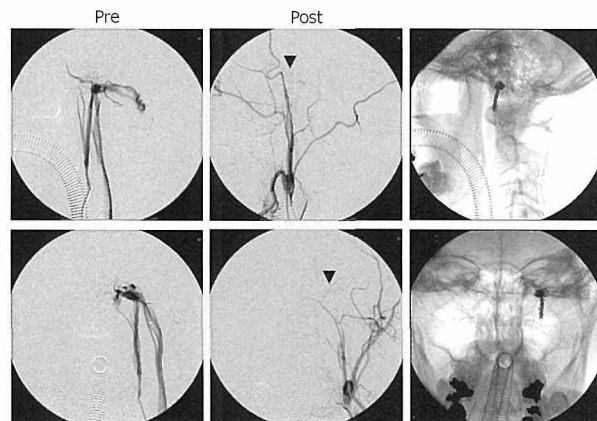


Fig. 5 左上行咽頭動脈選択造影（コイル塞栓術後）
pharyngeal branchを介してわずかにシャントが残存した（▲）。頭蓋内静脈への逆流は消失した。

術後経過：術後、耳鳴は消失した。術後CTでは左舌下神経管近傍にcoil massが確認された（Fig. 6）。無症候性病変を含め、脳出血や梗塞巣は認められなかった。経過は良好であり、神経脱落症状なく、独歩退院した。術後3ヶ月で血管撮影を施行したが、術直後と著変なく、後方



Fig. 6 術後CT
左舌下神経管近傍にcoil massが認められた（○）。

へのシャントが少量残存していた。頭蓋内静脈への逆流は認められなかった。症状の再燃もないことから、引き続き、経過観察する方針とした。

考 察

ACC-DAVFは頭蓋底、頸静脈球部や舌下神経管近傍に発生する稀なDAVFである。従来、marginal sinus DAVF¹⁾、hypoglossal canal DAVF^{2,3)}、inferior petrosal DAVF⁷⁾、jugular foramen DAVF⁸⁾とされてきた疾患の一部がこれに相当すると思われる。ACCは頸静脈球部近傍に存在する、3-5 mmのvenous confluenceであり、近年、頭蓋頸椎移行部のvenous systemが理解されるにつれ、注目を集めている。周囲との連絡は、舌下神経管内を走行するanterior condylar veinや側方のlateral condylar veinを介してvertebral venous plexusへ、前方ではIPSやTrolard's inferior petrooccipital veinを介して海綿静脈洞へ通じている (Fig. 7)。同部位のDAVFは非常にまれであり、本

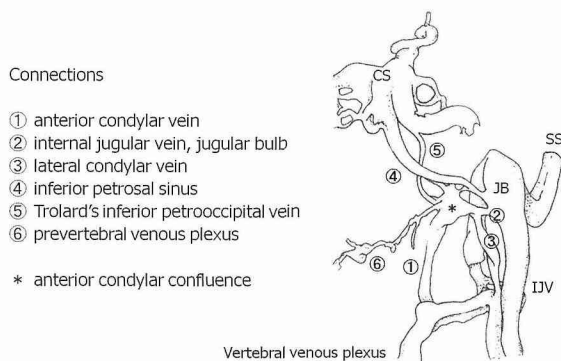


Fig. 7 Anterior condylar confluence周囲の解剖
(文献4, 13の図を改編)

APA: ascending pharyngeal artery, CS: cavernous sinus, IJV: internal jugular vein, IPS: inferior petrosal sinus, SS: sigmoid sinus

邦のアンケート調査では、ACCそのものの統計ではないが、condylar vein 0.5%と報告されている⁹⁾。最も多い症状は強い耳鳴である。舌下神経管内を走行するanterior condylar veinへの流出が多いと舌下神経麻痺をきたすこともある。また、IPSやTrolard's inferior petrooccipital veinを逆流し、海綿静脈洞へflowが及んだ場合、複視 (外転神経麻痺)、眼球突出、視力障害といった、あたかも海綿静脈洞のDAVFのような症状を呈することがある。

治療戦略を立てる上でshunt pointの同定が重要とな

る。同側の外頸動脈撮影、椎骨動脈撮影では動静脈が重なり、評価が困難となることがある。APAはほぼ全例で関与するfeederであるため、選択造影を行うとshunt pointやdrainage patternの理解が得られることが多い⁴⁾。また、対側からfeederが来ていることも多く、その場合は対側外頸動脈撮影を行うと動静脈が重ならず、評価がしやすい¹⁰⁾。その他、3D-DSAやACC選択造影が有用とといった報告もある⁴⁾。

治療は経静脈的な、シャントのfistula pointを有するdural sinusのspaceを選択的に塞栓して治癒せしめるtarget embolizationが望ましい。特にACC周囲には舌下神経も存在し、over packingによる舌下神経麻痺の増悪の報告もあることから注意を要する。本症例ではシャント部位をACCと判断し、target embolizationを試みたが、シャントは徐々に減少するものの、fistula pointを完全にpackできずに完全消失には至らなかった。頭蓋内へのflowが残存したまま、頭蓋外後方へのflowが減少する状況となった。Trolard's inferior petrooccipital veinなど、ACC前方の塞栓も試みたがmicrocatheterの誘導が困難であった。頭蓋内静脈への逆流の増加での種々の合併症を危惧し、経動脈的塞栓へ方針を変更した。Shunt pointの同定が困難な場合や、target embolizationを試みたがシャント消失に至らない場合では、IPSなど頭蓋内へのdrainerを確実に処置し、必ず処置すべきものをまず塞栓した上で、ACCに詰め戻るといったoutlet embolizationでの治療戦略も考慮すべきと考えられた。経動脈的塞栓を追加する場合、基本的にはcoil ligationとなる。液体塞栓材料は脳神経IX-XII麻痺の危険性があるため、避けた方が安全とされている¹¹⁾。治療の合併症としては、舌下神経管内を走行するanterior condylar veinのtight packingによる圧迫で舌下神経麻痺をきたすことがあるため、over packingには注意が必要である¹²⁾。

この合併症を意識するあまり、shunt pointの閉塞が十分に行われない状況も生ずる可能性はあるが、Manabeらの報告では減少したAV shunt残存例のfollow-upで完全消失を認めた例もあり¹⁰⁾、治療終了のタイミングは重要である。また、症状によっても治療戦略を術中所見でフレキシブルに対応することが重要である。

結 語

コイル塞栓術を施行したACC-DAVFの一例を経験した。

頭蓋底、特に頸静脈球部や舌下神経管近傍に異常血管を認めた場合、ACC-DAVFの可能性を考える必要がある。ACC周囲の解剖を理解し、feeder, drainerを確認して、shunt pointを同定することが重要である。

治療はシャントのfistula pointを有するdural sinusのspaceを選択的に塞栓して治癒せしめるtarget embolizationを基本とするが、shunt pointの同定が困難な場合、shunt spaceへの進入が困難な場合、およびシャントそのものの閉塞ができない状況では、各drainerから塞栓をはじめ、ACCに詰め戻るoutlet embolizationの方法も考慮される。過剰なtight packingにより、舌下神経麻痺を生ずることがあり、注意を要する。

本論文の要旨の一部は、第9回日本脳神経血管内治療学会北海道地方会（2008年10月、札幌）で発表した。

文 献

- 1) McDougall CG, Halbach VV, Dowd CF, et al: Dural arteriovenous fistulas of the marginal sinus. *AJNR Am J Neuroradiol*, 1997; 18: 1565-1572.
- 2) Kiyosue H, Tanoue S, Okahara M, et al: Ocular symptoms associated with a dural arteriovenous fistula involving the hypoglossal canal: selective transvenous coil embolization. Case report. *J Neurosurg*, 2001; 94: 630-632.
- 3) 小宮山雅樹, 石黒友也, 松阪康弘ほか: 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。脳と神経, 2002; 54: 830-831.
- 4) Miyachi S, Ohshima T, Izumi T, et al: Dural arteriovenous fistula at the anterior condylar confluence. *Interventional Neuroradiology*, 2008; 14: 303-311.
- 5) Liu JK, Mahaney K, Barnwell SL, et al: Dural arteriovenous fistula of the anterior condylar confluence and hypoglossal canal mimicking a jugular foramen tumor. *J Neurosurg*, 2008; 109: 335-340.
- 6) Abiko M, Ikawa F, Ohbayashi N, et al: Endovascular treatment for dural arteriovenous fistula of the anterior condylar confluence involving the anterior condylar vein. A report of two cases. *Interventional Neuroradiology*, 2008; 14: 313-317.
- 7) Barnwell SL, Halbach VV, Dowd CF, et al: Dural arteriovenous fistulas involving the inferior petrosal sinus: angiographic findings in six patients. *AJNR Am J Neuroradiol*, 1990; 11: 511-516.
- 8) Kuwayama N, Akai T, Horie Y, et al: Dural arteriovenous fistulae involving the transverse-sigmoid sinus and foramen magnum. *Surg Neurol*, 1994; 41: 389-395.
- 9) 桑山直也: わが国における頭蓋内および脊髄硬膜動静脈瘻の疫学的調査. 平成15年度-平成16年度 科学研究費補助金 (基盤研究) 研究成果報告書, 2005.
- 10) Manabe S, Satoh K, Matsubara S, et al: Characteristics, diagnosis and treatment of hypoglossal canal dural arteriovenous fistula: report of nine cases. *Neuroradiology*, 2008; 50: 715-721.
- 11) Lasjaunias P, ed: *Craniofacial and Upper Cervical Arteries*. Baltimore: Williams & Wilkins; 1981. pp105-118.
- 12) Ernst R, Bulas R, Tomsick T, et al: Three cases of dural arteriovenous fistula of the anterior condylar vein within the hypoglossal canal. *AJNR Am J Neuroradiol*, 1999; 20: 2016-2020.
- 13) San Millán Ruíz D, Gailloud P, Rüfenacht DA, et al: The craniocervical venous system in relation to cerebral venous drainage. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2002; 23: 1500-1508.