

症 例

症候性静脈灌流障害を呈する AVM に対して PTA が有効であった 1 例

米澤あづさ¹、水橋 里弥¹、根木 宏明¹
大塚 俊宏¹、山根 文孝²、神山 信也¹

Arteriovenous Malformation with Symptomatic Venous Outflow Impairment Improved by Percutaneous Transluminal Angioplasty: A Case Report

Azusa YONEZAWA, M.D.¹, Satomi MIZUHASHI, M.D., Ph.D.¹, Hiroaki NEKI, M.D., Ph.D.¹, Toshihiro OHTSUKA, M.D.¹, Fumitaka YAMANE, M.D., Ph.D.², and Shinya KOHYAMA, M.D., Ph.D.¹

¹Department of Neurosurgery, Saitama Medical University International Medical Center, Hidaka, Saitama, and ²Department of Neurosurgery, Teikyo University, Tokyo, Japan

Summary: We report a case of arteriovenous malformation (AVM) with symptomatic venous outflow impairment, which improved following percutaneous transluminal angioplasty (PTA). A 48-year-old woman, diagnosed with Spetzler-Martin Grade 4 AVM, was admitted to our hospital for an epileptic seizure. Magnetic resonance imaging (MRI) demonstrated AVM in the left frontal lobe with edema. The edema was not observed earlier. Angiography revealed severe stenosis of the superior sagittal sinus (SSS), which is the main drainage route of AVM. Comparison with angiography that was performed one month prior to admission revealed that the SSS stenosis had progressed. We performed PTA to decrease the risk of hemorrhage and improve the symptoms. After PTA, patient's aphasia, paresthesia, and headache improved within a day. These observations suggest that for AVM with symptomatic venous outflow impairment, especially in inoperable or difficult cases, PTA is a valid approach.

Key words:

- arteriovenous malformation
- venous drainage
- stenosis
- edema
- percutaneous transluminal angioplasty

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 48: 217-222, 2020

はじめに

脳動静脈奇形(arteriovenous malformation: AVM)の流出路となっている静脈洞が狭窄・閉塞し、シャント血が皮質に向かうと、静脈うっ滞による静脈性梗塞や出血を呈する可能性がある。今回、上矢状静脈洞(superior sagittal sinus: SSS)狭窄による静脈灌流障害をきたした症例に対

して経皮的血管拡張術(percutaneous transluminal angioplasty: PTA)を施行し、良好な結果を得られたので報告する。

症 例

患者: 48 歳, 女性。
家族歴: 特記事項なし。

¹埼玉医科大学国際医療センター 脳血管内治療科, ²帝京大学医学部附属病院 脳神経外科(受稿日 2018. 2. 13)(脱稿日 2018. 10. 31)[連絡先: 〒 350-1298 埼玉県日高市山根 1397-1 埼玉医科大学国際医療センター 脳神経外科 米澤あづさ] [Address correspondence: Azusa YONEZAWA, M.D., Department of Neurosurgery, Saitama Medical University International Medical Center, 1397-1 Yamane, Hidaka, Saitama 350-1298, Japan]

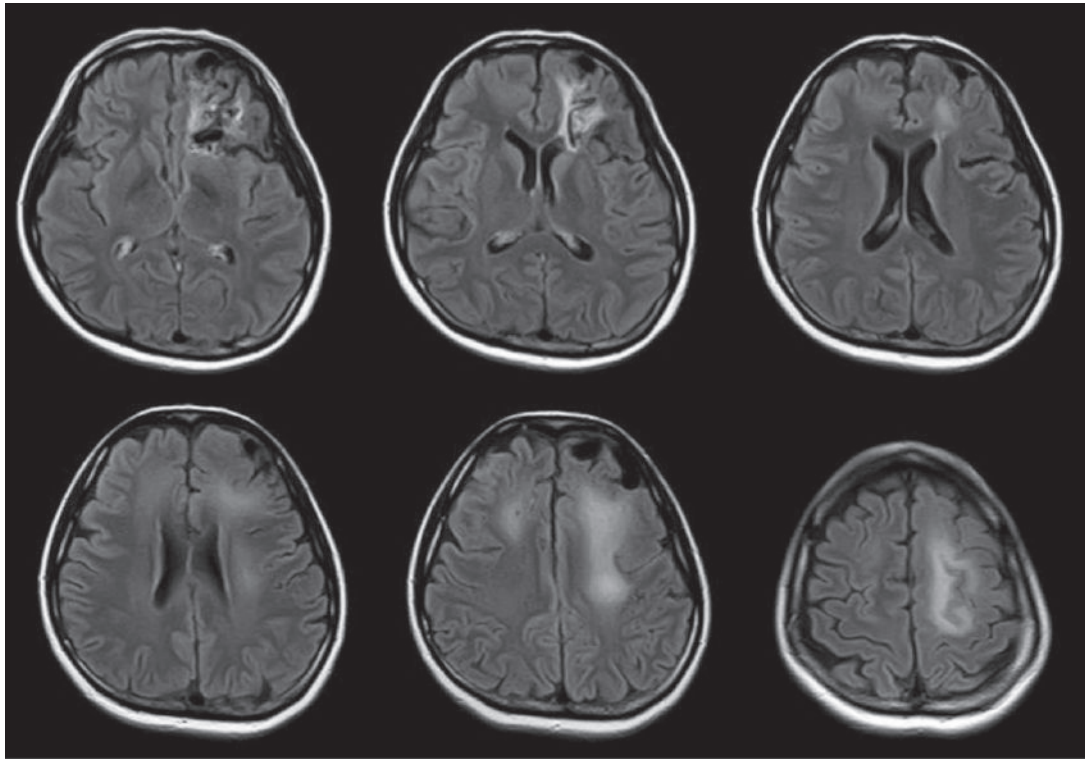


Fig. 1 Magnetic resonance imaging (FLAIR) revealed AVM surrounded by edema in the left frontal lobe.

既往歴：45歳時に乳がんに対して切除術を行い、タモキシフェンを内服していた。

現病歴：47歳時に初発の症候性てんかんで発症した左前頭葉のAVMで当院に紹介となった。Spetzler & Martin Grade 4であり、一旦は保存的治療の方針とした。今回、入院の2カ月前から右上肢の脱力が出現し、magnetic resonance imaging (MRI)にて左前頭葉に新たに脳浮腫を認めた。入院の1カ月前には前医で脳血管撮影を施行し、治療を再度検討することとなっていた。しかし、当院再診にいたる前にてんかん発作が出現して前医に入院となり、その翌日に当院転院となった。

入院時所見：失語、右上肢優位に軽度の異常感覚を認めた。

入院時血液検査所見：一般生化学に特記すべき異常なし。APTT 37.1 sec, PT-INR 1.08, Dダイマー 0.65 $\mu\text{g}/\text{ml}$, プラスミノノーゲン 97%, プロテインC抗原 72%, プロテインS抗原 82%。

画像所見：前医のMRI fluid attenuated inversion recovery (FLAIR) (入院の1カ月前に施行)で、左前頭葉白質に高信号を認めた(**Fig. 1**)。緊急で脳血管撮影を施行し、左内頸動脈撮影にて、左前頭葉底部に左中大脳動脈前枝をfeederとし、6 cm大のnidus、皮質静脈を介してSSSへ

流入するdrainerを有するAVMを認めた(**Fig. 2**)。前医で施行した1カ月前の血管撮影所見と比較して、bregmaから後方に約5 cmのところまでSSSが狭窄し、狭窄の進行によって静脈灌流障害をきたしていると診断した(**Fig. 3**)。この時点でのAVMの摘出は困難を伴う状況であったため、SSSを再開通させることで静脈灌流障害を改善し、待機的に摘出術を行う方針とした。

治療：右大腿静脈から6 Fr Axcelguide 80 cm (メディキット, 東京)を右頸静脈球付近に留置した。0.035 inch ガイドワイヤー (メディキット, 東京)を先行して、4.2 Fr ASAHI FUBUKI (朝日インテック, 愛知)と6 Fr ASAHI FUBUKI (朝日インテック, 愛知)を同軸にSSSに誘導した。6 Fr ASAHI FUBUKIをSSS狭窄部直前まで誘導し、ASAHI CHIKAI 0.014 inch (朝日インテック, 愛知)とEchelon10 (COVIDIEN, Dublin, Ireland)にて狭窄部を通過しようとしたが、ASAHI CHIKAI 0.014 inchでは通過できなかったため、0.035 inch ガイドワイヤーで狭窄部を通過し、4.2 Fr ASAHI FUBUKIを追従させた。0.035 inch ガイドワイヤーとASAHI CHIKAI 0.014 inchをexchangeした後に、Gateway 3 mm \times 15 mm (Stryker, Kalamazoo, MI, USA)をSSS狭窄部に誘導し、6 atm (3 mm)まで拡張した。次いで、十分な拡張を得るためにSterling 4 mm \times

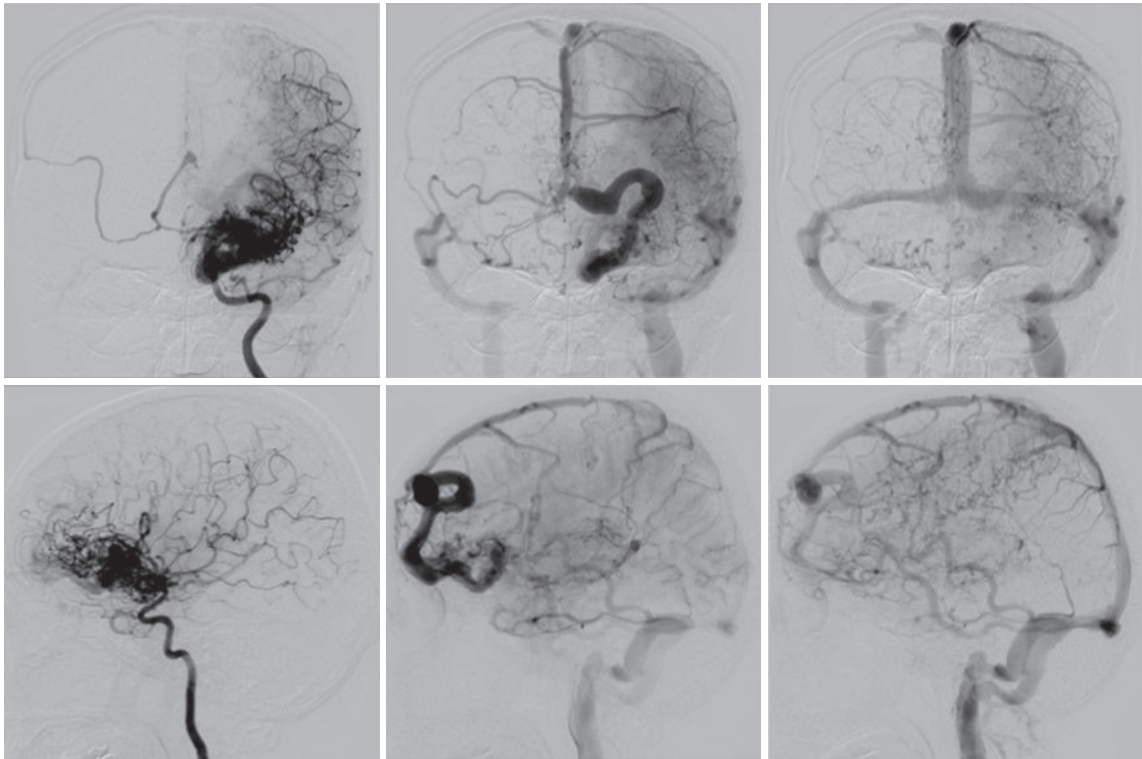


Fig. 2 Angiography revealed severe stenosis of the superior sagittal sinus (SSS), which is the main drainage route of AVM.

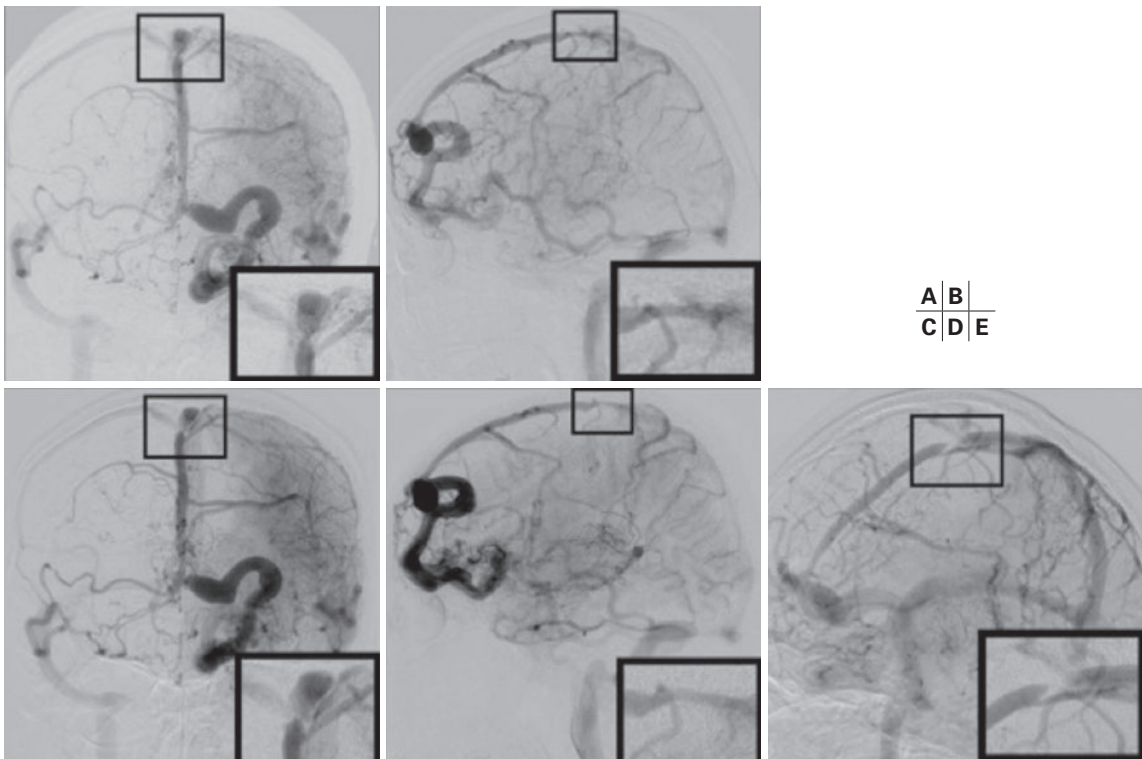


Fig. 3 Angiography that was performed one month prior to admission revealed superior sagittal sinus (SSS) stenosis. **A:** frontal view, **B:** lateral view. Angiography on admission revealed that the SSS stenosis had progressed. **C:** medial view, **D:** lateral view, **E:** oblique view.

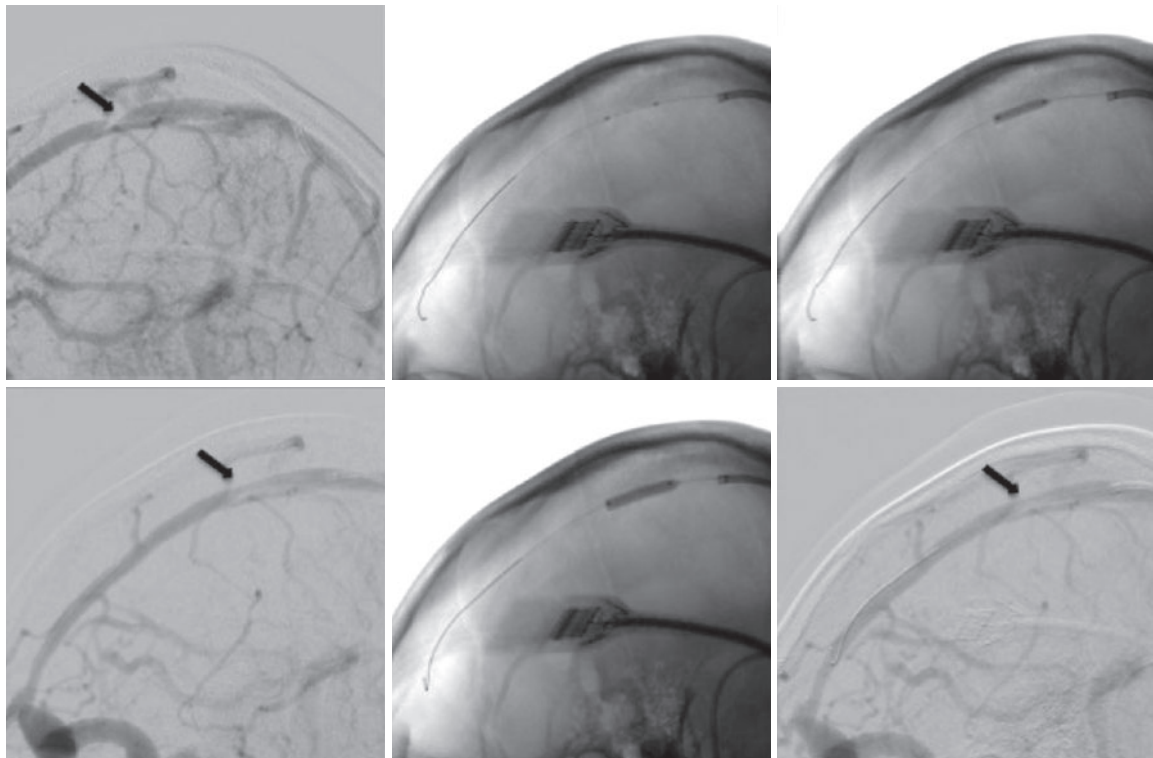


Fig. 4 **A:** Before the percutaneous transluminal angioplasty (PTA), there was severe superior sagittal sinus (SSS) stenosis.
B: A 0.014-inch guidewire (ASAHI CHIKAI) was placed at the distal portion of the stenosis lesion.
C: Dilatation was performed using a Gateway (3 mm × 15 mm).
D: After the dilatation using a Gateway (3 mm × 15 mm), SSS stenosis improved.
E: Additional dilatation was performed using a Sterling (4 mm × 20 mm).
F: After the dilatation using a Sterling (4 mm × 20 mm), SSS stenosis further improved.

A	B	C
D	E	F

20 mm (Boston Scientific, Marlborough, MA, USA)にて6 atm (3.99 mm)まで拡張した(**Fig. 4**)。SSSが拡張し、静脈のうっ滞が緩和されていることを確認して手技を終了した(**Fig. 5**)。

術後経過：治療後は意識清明となり、失語は改善し、頭痛も軽快傾向であった。脳CTで出血性合併症は認めなかった。術後9日目に施行したMRIでは、浮腫は残存しているものの、改善を認めた(**Fig. 6**)。近日中にAVM摘出術を行うことを考慮し、術後はヘパリンの持続投与を行った。術後10日目にフォローアップの脳血管撮影を施行した。AVMの構造変化はなく、SSSはわずかな再狭窄を認めたが、静脈灌流障害はなく、経過観察の方針とした。その後も症状の再発はなく、当院脳卒中外科に転科となり、術後29日目にAVM摘出術施行となった。

考 察

未破裂AVMに浮腫を伴うことはまれであり、3-4%と

報告されている²⁾³⁾⁵⁾。浮腫の原因としては静脈灌流路の異常が多く、Kimら²⁾は329例の未破裂AVMのうち、浮腫を伴っていた13例について検討し、38.5%で静脈狭窄を認めたと報告している。また、未破裂AVMに浮腫を伴った症例では、自然軽快した報告も認めるものの⁴⁾、症状が進行する症例は出血のリスクが高いとされている²⁾⁶⁾。

未破裂AVMで症候性静脈灌流障害をきたした際に、狭窄・閉塞した静脈洞にPTAやステント留置術を施行した報告は少ない⁸⁾。Tsumotoら⁷⁾は、S状静脈洞の狭窄をきたしたAVM(Spetzler & Martin Grade 4)に対して、症状緩和を目的としてステント留置術を施行した症例を報告している。同症例は、ステント留置後に症状は改善したが、3カ月後の脳血管撮影にて再狭窄を認め、6カ月後の評価では狭窄が進行し、その後、出血をきたしている。Higginsら¹⁾は摘出困難な脳幹部のAVMに対して、狭窄した直静脈洞にステント留置術を行い、症状の改善を認めている。同症例は、6カ月後に再狭窄をきたしたため、ス

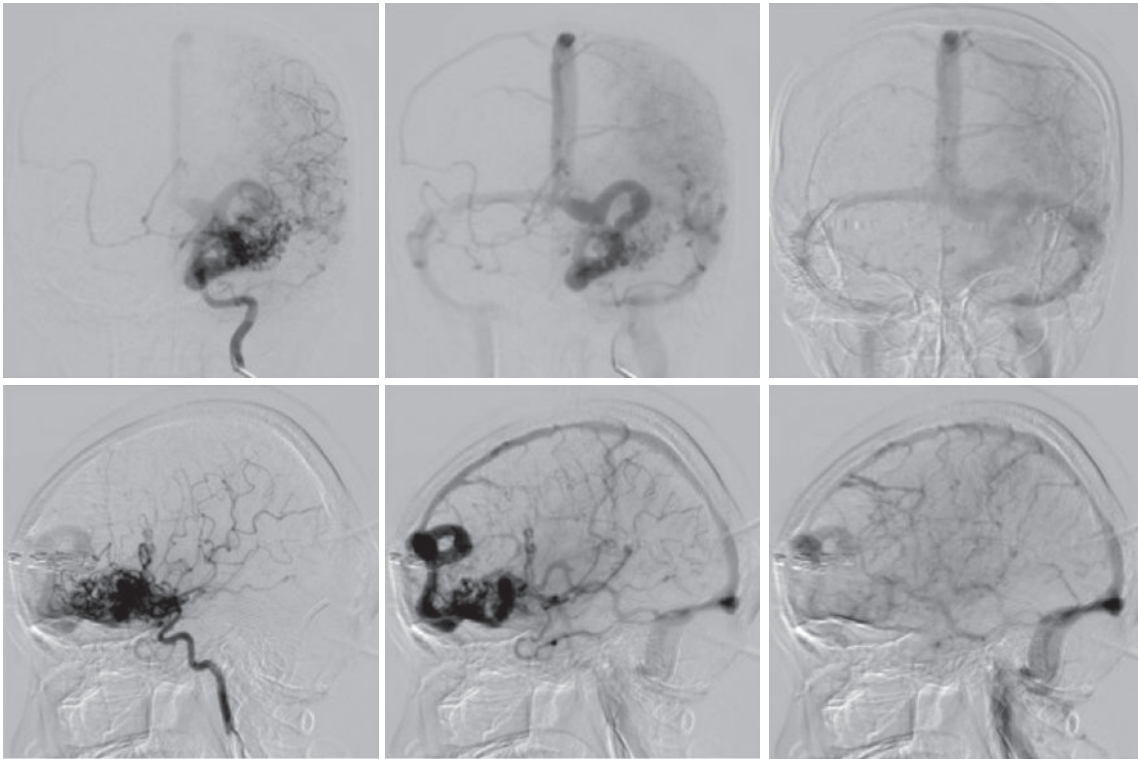


Fig. 5 After the percutaneous transluminal angioplasty (PTA), severe superior sagittal sinus (SSS) had restored patency, and venous outflow impairment had improved.

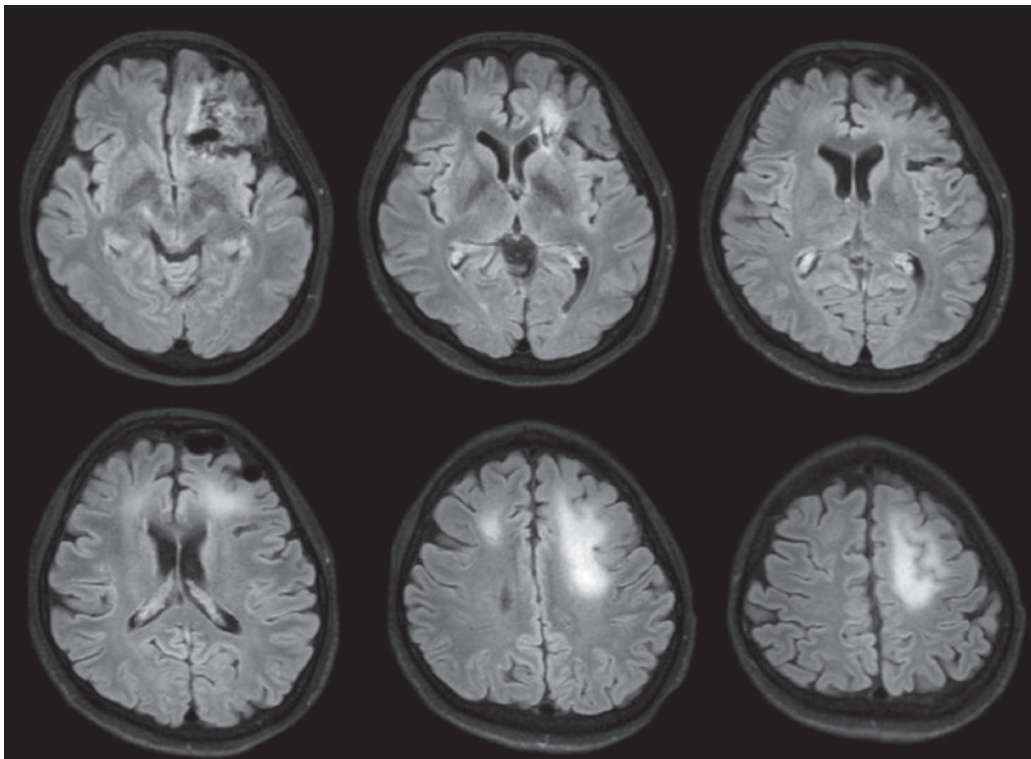


Fig. 6 Magnetic resonance imaging (FLAIR) nine days after percutaneous transluminal angioplasty (PTA) showed that the edema remained but was slightly improved.

テント拡張術を追加し、良好な結果を得ている。

本症例は Spetzler & Martin Grade 4 で、本来は保存的治療の方針であったこと、出血例ではないことから、摘出術の適応については検討を要すると判断した。しかし、症候性であり、浮腫を伴っている点から、出血のリスクを下げる必要があると考え、緊急で PTA を施行した。その結果、一旦は切迫した状況を回避して、今後の治療について協議できる時間を捻出することができた。症候性静脈灌流障害をきたした未破裂 AVM に対して、摘出術の適応がある症例については緊急手術が第一選択となるが、Spetzler & Martin Grade 4 または 5 の症例や、直達困難な症例に対しては PTA を施行して、一時的にでも症状緩和や出血リスクの軽減を図ることは有用であると考え、ステント留置術に関しては、長期的な予後は不明であること、抗血小板剤の内服が必要となることを考慮すると、待機的に摘出術を行う可能性がある症例については PTA のみに留めたほうが安全である。摘出術の適応がない症例や摘出困難な症例については、ステント留置術も考慮される。本症例に関しては待機的に摘出術を行う可能性があったため、PTA のみに留めた。PTA のみ施行し、摘出術を行わなかった場合の転帰については、渉猟し得た範囲では報告がなかったため、現時点では PTA は補助的な治療手段に留まる。長期的に良好な予後が得られるかは今後の報告が待たれる。

結 語

症候性静脈灌流障害をきたした未破裂 AVM に対して、

PTA によって出血のリスクを軽減し、症状を改善することができた。進行性かつ重篤な静脈灌流障害をきたした AVM においては早急な治療が必要であるが、緊急での摘出が困難な状況であった場合は、PTA によって静脈灌流路を確保して出血のリスクを下げるのが有効である。

文 献

- 1) Higgins JNP, Kirkpatrick P: Stenting venous outflow gives symptomatic improvement in a patient with an inoperable brainstem arteriovenous malformation. *Br J Neurosurg* 27: 698-700, 2013
- 2) Kim B, Sarma D, Lee S, *et al*: Brain edema associated with unruptured brain arteriovenous malformations. *Neuroradiology* 51: 327-335, 2009
- 3) Kumar AJ, Viñuela F, Fox AJ, *et al*: Unruptured intracranial arteriovenous malformations do cause mass effect. *AJNR Am J Neuroradiol* 6: 29-32, 1985
- 4) 前田善久, 田中俊也, 井戸啓介, ほか: 脳動静脈奇形周囲の浮腫が増悪し、そして自然軽快した 1 例. *脳卒中* 38: 267-271, 2016
- 5) Miyasaka Y, Kurata A, Tanaka R, *et al*: Mass effect caused by clinically unruptured cerebral arteriovenous malformations. *Neurosurgery* 41: 1060-1063; discussion 1063, 1997
- 6) Miyasaka Y, Yada K, Ohwada T, *et al*: An analysis of the venous drainage system as a factor in hemorrhage from arteriovenous malformations. *J Neurosurg* 76: 239-243, 1992
- 7) Tsumoto T, Miyamoto T, Shimizu M, *et al*: Restenosis of the sigmoid sinus after stenting for treatment of intracranial venous hypertension: case report. *Neuroradiology* 45: 911-915, 2003
- 8) Xu K, Yu T, Yuan Y, *et al*: Current status of the application of intracranial venous sinus stenting. *Int J Med Sci* 12: 780-789, 2015