

〈脳神経外科速報 vol.34 no.3 e20243403d, 2024〉

経動脈的コイル塞栓術のみで 完治が得られた single-hole-type の頸静脈球部硬膜動静脈瘻の 1例

高杉祐二¹⁾, 徳永浩司¹⁾, 高越寛之¹⁾, 西条智也¹⁾, 梅田剛志¹⁾, 服部靖彦¹⁾, 井上智¹⁾,
渡邊恭一¹⁾, 桐山英樹¹⁾, 松本健五¹⁾

1) 地方独立行政法人岡山市立総合医療センター岡山市立市民病院脳神経外科 〒700-8557 岡山県岡山市北区北長瀬表町 3-20-1

Key Slide

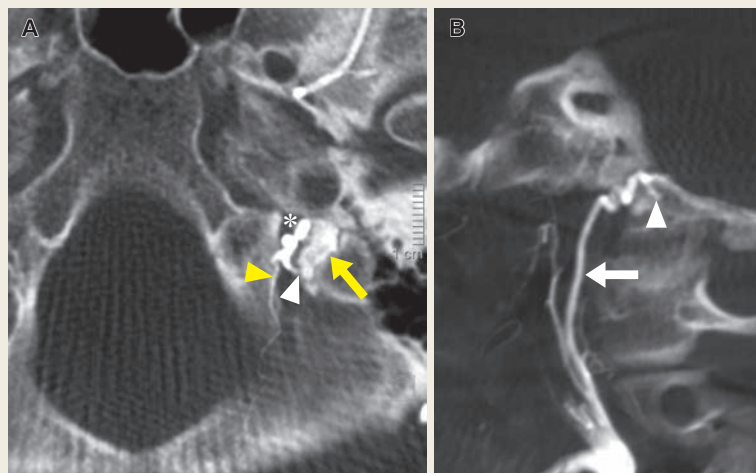


Fig. 2

A, B : Axial (A) and sagittal (B) views of slab maximum intensity projection images of the left external carotid angiograms presenting the fistula (white arrowhead) between the jugular branch of the left ascending pharyngeal artery (white arrow) and the posteromedial wall of the left jugular bulb (yellow arrow) . A meningeal branch (yellow arrowhead) courses laterally to the margin of the foramen magnum. The extradural neural axis compartment (asterisk) was situated at the anteromedial part of the jugular foramen.

A case of single-hole-type jugular bulb dural arteriovenous fistula treated by transarterial coil embolization alone

Yuji TAKASUGI¹⁾, Koji TOKUNAGA¹⁾, Hiroyuki TAKAGOSHI¹⁾, Tomoya SAIJO¹⁾, Tsuyoshi UMEDA¹⁾, Yasuhiko HATTORI¹⁾, Satoshi INOUE¹⁾, Kyoichi WATANABE¹⁾, Hideki KIRIYAMA¹⁾, Kengo MATSUMOTO¹⁾

1) Department of Neurosurgery, Okayama City Hospital, Okayama City General Medical Center

Transarterial coil embolization for dural arteriovenous fistulas (DAVFs) may result in recurrence due to incomplete occlusion of fistulous points. Here, we present a unique case of a single-hole-type DAVF located at the jugular bulb, for which the use of liquid embolic materials was deemed inappropriate. A woman in her 30s presented with sudden-onset pulsatile tinnitus. A left external carotid angiogram revealed a single-channel fistula between the jugular branch of the ascending pharyngeal artery and the jugular bulb. Further imaging with slab maximum-intensity projection confirmed the precise location of the fistula at the posteromedial wall of the left jugular bulb, leading to a diagnosis of DAVF. Treatment involved transarterial coil embolization, wherein a microcatheter was advanced into the jugular branch just proximal to the fistula. A distal portion of the

first coil was placed in the jugular bulb through the fistula, forming one and a half loops. Successful and complete obliteration of the fistula was achieved following the transarterial delivery of five coils, without any neurological complications. This case highlights the potential of transarterial coil embolization as a safe and curative treatment modality for single-hole-type DAVFs.

Key Words : ascending pharyngeal artery, coil embolization, dural arteriovenous fistula, endovascular surgery, jugular foramen

(Received July 18, 2023; Accepted August 18, 2023)

Correspondence to Koji TOKUNAGA, M.D.,
Department of Neurosurgery, Okayama City Hospital,
Okayama City General Medical Center, 3-20-1 Kitanagase-
omote-machi, Kita-ku, Okayama-shi, Okayama 700-8557,
Japan

E-mail: kojitoku0707 [at] mac.com

I. 緒言

拍動性耳鳴のみで発症する頭蓋内の硬膜動静脈瘻（dural arteriovenous fistula : DAVF）の多くは横・S状静脈洞に存在し，頸静脈孔内の頸静脈球（jugular bulb : JB）部の報告は少ない．また DAVF に対する経動脈的コイル塞栓術は瘻孔部が完全には遮断されず，再発を来すことが多い．今回我々は，経動脈的コイル塞栓のみで根治が得られた，稀な single-hole-type の JB 部 DAVF の 1 例を経験したので，頸静脈孔の硬膜の解剖や治療手段の選択について文献的考察を加え報告する．

II. 症例呈示

症例：30代，女性．

既往歴：発症前に明らかな外傷や感染症の既往はなく，特記すべきことはなかった．当科初診 10 日前に子宮頸がんに対し他院で子宮全摘術が施行された．

現病歴：当科初診 2 年前の妊娠 8 カ月目に突然左側の拍動性耳鳴を生じた．それ以来耳鳴が持続し，日常生活に支障があることから当科外来を受診した．

来院時現症：左耳周囲の聴診では血管雑音は聴取されなかった．患者が自覚する拍動性の左耳鳴は，左頸動脈の用手的圧迫により著明に軽減した．下位脳神経症状やその他の神経学的異常はみられなかった．

画像所見：MRI の Time-of-flight 画像では左上行咽頭動脈が発達しており，左 JB 部付近での動静脈短絡が疑われた．脳脊髄実質には明らかな浮腫や出血はみられなかった．脳血管造影の左外頸動脈撮影では，拡張した左上行咽頭動脈の jugular branch から左 JB への動静脈短絡を形成していた（Fig. 1A, B）．他の動脈からの流入血管はみられなかった．左 S 状静脈洞から内頸静脈への血流は順行性で，脳皮質静脈への逆流はみられなかった．上行咽頭動脈の選択的 3D-DSA では，JB の後内側部に流出する単一の瘻孔による動静脈短絡が確認された（Fig. 1C）．また短絡の近位部内側からは後方の大孔辺縁の硬膜への枝が分岐していた（Fig. 1C yellow arrowhead）．左外頸動脈造影の slab maximum-intensity projection（MIP）画像では，短絡血は頸静脈孔内で JB の後内側部に流出しており，JB を取り巻く硬膜上に短絡が存在していると判断されたことから Cognard type I, Borden type I の DAVF と診断した（Fig. 2）．

入院後経過：局所麻酔下に経動脈的塞栓術を施行した．左外頸動脈に 6 Fr ガイディングカテーテルを留置し，この中に CHIKAI X010 マイクロガイドワイヤ（朝日インテック），1.5/2.7 Fr Marathon マイクロカテーテル（日本メドトロニック），

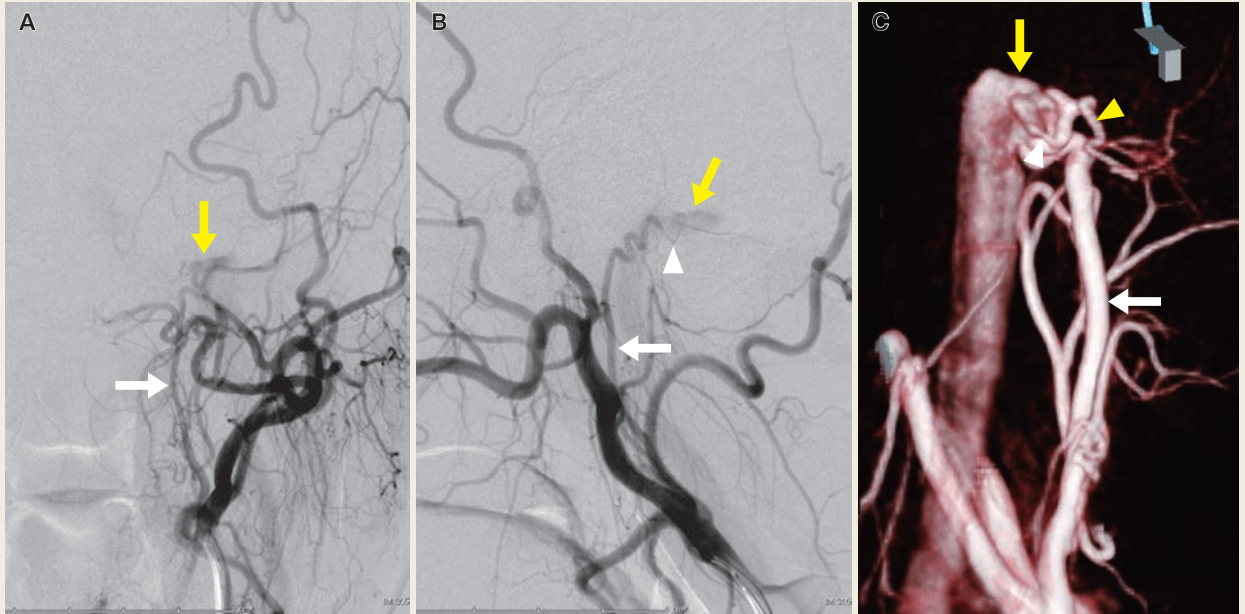


Fig. 1

A, B : Anteroposterior (A) and lateral (B) views of the left external carotid angiograms depicting a Borden type 1 dural arteriovenous fistula (white arrowhead) draining into the left jugular bulb (yellow arrow) fed by the dilated jugular branch of the left ascending pharyngeal artery (white arrow) .
 C : Posteroanterior view of 3D-DSA of the left ascending pharyngeal artery illustrating the fistula draining through the posteromedial wall of the left jugular bulb. A meningeal branch (yellow arrowhead) arises from the portion proximal to the fistula.

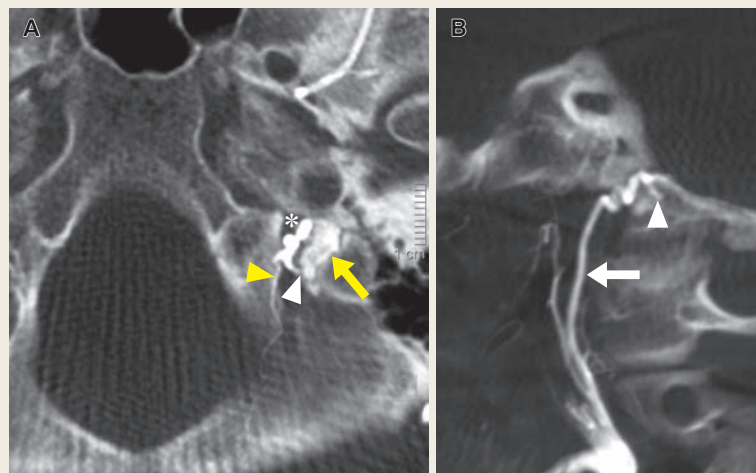


Fig. 2

A, B : Axial (A) and sagittal (B) views of slab maximum intensity projection images of the left external carotid angiograms presenting the fistula (white arrowhead) between the jugular branch of the left ascending pharyngeal artery (white arrow) and the posteromedial wall of the left jugular bulb (yellow arrow) . A meningeal branch (yellow arrowhead) courses laterally to the margin of the foramen magnum. The extradural neural axis compartment (asterisk) was situated at the anteromedial part of the jugular foramen.

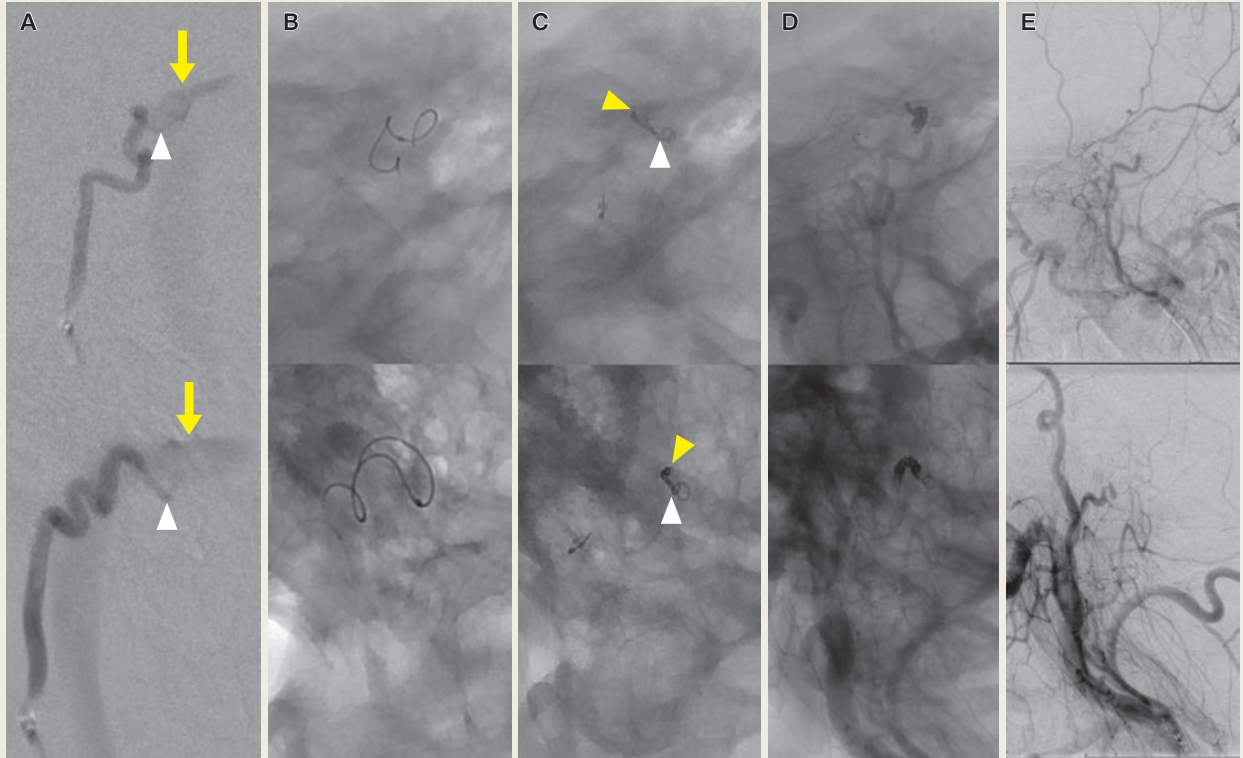


Fig. 3 Anteroposterior (top) and lateral (bottom) views of the images during transarterial coil embolization

- A : Selective angiograms of the jugular branch of the left ascending pharyngeal artery illustrating the fistula (white arrowhead) draining into the jugular bulb (yellow arrow) .
- B : Plain x-ray images during microcatheter navigation, demonstrating the tip of a microguidewire placed in the jugular bulb.
- C : Plain x-ray images of the first coil, revealing the head of the coil delivered into the jugular bulb, traversing the fistula (white arrowhead) . The proximal portion of the coil occluded the origin of the meningeal branch (yellow arrowhead) .
- D, E : Postoperative native (D) and subtracted (E) angiograms showing the complete occlusion of the fistula after delivery of five coils.

3.2/3.4 Fr Guidepost ディスタルアクセスカテーテル (東海メディカルプロダクツ) を同軸的に進めた。上行咽頭動脈の jugular branch に誘導したマイクロカテーテルからの造影で JB への動静脈短絡部を確認し (Fig. 3A), 進めたワイヤは容易に短絡を通過して JB 内に到達し, Marathon 先端は短絡直前部まで誘導できた (Fig. 3B)。Marathon から i-ED Complex SilkySoft コイル 1.5 mm/2 cm (カネカメディックス) を進めたが, カテ先が安定せずコイル, Marathon をいったん回収した。Marathon に替えて 1.6/2.1 Fr Headway Duo マイクロカテーテル (テルモ) を短絡直前部まで誘導し, 上記のコイルを再度用いると, コイルは容易に静脈側に逸脱したが, 何度か出し入れをくり返すと, コイル先端側の 1.5 ループのみが静脈側に存在し, 手前は短絡部から残せば側副血行路となり得る硬膜枝起始部まで充填する状況が得られたので離脱させた (Fig. 3C)。さらに 4 個のコイルを追加し, 短絡は完全に消失した

(Fig. 3D, E). 左S状静脈洞から内頸静脈にかけての静脈還流に問題は生じなかった。
術後経過：術後に耳鳴は完全に消失し、治療2年後も再発はみられていない。

III. 考 察

上行咽頭動脈の neuromeningeal branch は、hypoglossal branch と第IX, X, XI脳神経、頸静脈孔やS状静脈洞、錐体後面下部の硬膜などを栄養する jugular branch に分かれ、本症例では後者が単一の流入動脈となっていた^{1, 2)}。硬膜を含む頸静脈孔部の解剖については過去に詳細な報告があり^{3, 4)}、JBの静脈壁の大部分は、骨側の endosteal layer と内頸静脈側の meningeal layer の2層からなる硬膜に囲まれているが、JB前内側壁に接する部分では meningeal layer から移行した fascial sheath が頸静脈孔前内側部の extradural neural axis compartment との境界を形成している。また頸静脈孔より心臓側の頭蓋外では硬膜の meningeal layer は endosteal layer から離れ、内頸静脈の vascular fascial sheath に移行する。放射線学的には slab MIP 画像を用いることで短絡部と骨との関係が詳細に評価可能であり⁵⁾、本症例では動静脈短絡は骨内ではなく JB を覆う硬膜上に存在することが slab MIP 画像から判明し、DAVF と診断した。

拍動性耳鳴の原因疾患は多岐にわたり、動脈性の耳鳴の原因としては DAVF 以外にもグロームス腫瘍などの腫瘍性疾患や脳動脈狭窄が挙げられる⁶⁾。一方、静脈洞の血栓症や狭窄、JBの形態異常などの静脈性による耳鳴を生じることもあり、これらに対する治療として静脈拡張部の外科的修復術や静脈洞へのステント・コイル留置術の報告もみられる^{7, 8)}。DAVF が原因となる耳鳴に関しては、Anらの報告では、220例の DAVF のうち、30例 (13.6%) が拍動性耳鳴のみの症状を呈し、そのうちの70%が横・S状静脈洞部、10%が舌下神経管部の DAVF で、JB部のものは1例のみであり、また30例中22例が皮質静脈への逆流をもたない Borden type I の DAVF であった⁹⁾。比較的良性の DAVF に対する侵襲的治療の適否については熟慮を要するところであるが、耳鳴が日常生活に支障を及ぼす程度であれば、治療の対象とすることは妥当と考えられた。

DAVF に対する治療手段としては、今日では外科的遮断術や放射線治療よりも血管内治療を優先することが多い^{9, 10)}。そのうち経静脈的塞栓術では罹患静脈洞を主にコイルを用いて閉塞し静脈側で短絡を遮断するが、本症例のように症状が耳鳴のみで、かつ静脈側の病的変化が乏しい例では、静脈洞本体の閉塞は控えるべきである。経静脈的アプローチでステントとコイルを併用すれば、静脈洞を温存しつつ動静脈短絡のみを閉塞できる可能性はあるが手技の難度は高いと思われる。近年

では本邦でも DAVF に対する経動脈的塞栓術の液体塞栓材料として n-butyl cyanoacrylate (NBCA) や Onyx が広く用いられるようになり,特に後者を用いると,段階的に時間をかけて注入することで多数の流入血管と罹患静脈洞を効果的に閉塞することが可能である. 本症例のような single-hole-type の DAVF では液体塞栓材料注入のコントロールの難度は高いが, 静脈洞内に protection balloon を置くなどの工夫をすれば放射線学的には今回と同様の閉塞結果が得られた可能性がある¹⁰⁾. しかし, 上行咽頭動脈への液体塞栓材料の注入には慎重であるべきで, Liang らは 4 例の JB 部 DAVF のうち, 1 例で上行咽頭動脈から Onyx を注入し合併症はなかったとしているものの¹¹⁾, Byun らは neuromeningeal branch への NBCA の注入後に味覚や咽頭反射の消失, 嚥下障害, 嗄声を生じた例を報告しており¹²⁾, jugular あるいは hypoglossal branch への液体塞栓材料の注入は脳神経麻痺や動脈吻合を介した脳梗塞のリスクが無視できない. 一方で, 複数の流入血管が関与する DAVF に対する経動脈的塞栓術でコイルのみを用いた場合, 合併症のリスクは低い, 近位部閉塞に終わって短絡部が遮断されずに再発を来すことが多く, JB 部 DAVF でもコイル塞栓後に完治せず, 直達術による流入血管の遮断を要した例が報告されている¹³⁾. 本症例は経動脈的に短絡直前までカテーテルが誘導可能な single-hole-type の DAVF であり, 静脈側から短絡部, さらに逆行性の側副路となる可能性のあった硬膜枝の起始部を含めた動脈側にコイルを詰め戻すことで, 完全閉塞が可能であった¹⁴⁾. もしマイクロカテーテルが短絡部近傍まで到達せずコイルによる近位部閉塞に終わった場合には, 短絡の閉塞が得られず, 直達術や放射線治療などの追加が必要となった可能性がある. Single-hole-type の頭蓋内 pial arteriovenous fistula で報告があるように¹⁵⁾, 液体塞栓材料が使用しにくい DAVF では, 病変部の解剖や治療材料の到達可能性をよく検討することで, コイルによる経動脈的塞栓術のみで根治的な治療結果が得られる例があることを理解すべきと思われる.

IV. 結 語

拍動性耳鳴のみで発症した single-hole-type の JB 部 DAVF の 1 治験例について報告した. 治療にあたっては, 病変部の構造や合併症のリスクを鑑み, 経静脈的アプローチや液体塞栓材料の使用は控え, 経動脈的コイル塞栓術のみを行い, 合併症なく根治的な治療結果が得られた.

倫理について

今回の報告にあたっては患者の承諾を得ている.

文献

- 1) Salaud C, et al: Dural arteries of the dorsoclival area. *Surg Radiol Anat* 42: 179-87, 2020
- 2) Martins C, et al: Microsurgical anatomy of the dural arteries. *Neurosurgery* 56 (2 Suppl) : 211-51; discussion 211-51, 2005
- 3) Bond JD, et al: Fine configuration of the dural fibrous network and the extradural neural axis compartment in the jugular foramen: an epoxy sheet plastination and confocal microscopy study. *J Neurosurg* 135: 136-46, 2020
- 4) Bernard F, et al: The interperiosteodural concept applied to the jugular foramen and its compartmentalization. *J Neurosurg* 129: 770-8, 2018
- 5) Hiramatsu M, et al: Osseous arteriovenous fistulas in the dorsum sellae, clivus, and condyle. *Neuroradiology* 63: 133-40, 2021
- 6) Pingree GM, et al: Neurosurgical Causes of Pulsatile Tinnitus: Contemporary Update. *Neurosurgery* 90: 161-9, 2022
- 7) Lee SY, et al: Longitudinal analysis of surgical outcome in subjects with pulsatile tinnitus originating from the sigmoid sinus. *Sci Rep* 10: 18194, 2020
- 8) Hitier M, et al: New treatment of vertigo caused by jugular bulb abnormalities. *Surg Innov* 21: 365-71, 2014
- 9) An YH, et al: Dural arteriovenous fistula masquerading as pulsatile tinnitus: radiologic assessment and clinical implications. *Sci Rep* 6: 36601, 2016
- 10) Tagawa M, et al: Utility of targeted balloon protection of the venous sinus for endovascular treatment of dural arteriovenous fistula by transarterial embolization with Onyx: A case report and literature review. *Surg Neurol Int* 12: 340, 2021
- 11) Liang G, et al: Endovascular treatment for dural arteriovenous fistulas at the jugular foramen. *Neurol India* 59: 420-3, 2011
- 12) Byun JS, et al: Dural arteriovenous fistula of jugular foramen with subarachnoid hemorrhage: selective transarterial embolization. *J Korean Neurosurg Soc* 45: 199-202, 2009
- 13) Tirakotai W, et al: Surgical management of dural arteriovenous fistulas with transosseous arterial feeders involving the jugular bulb. *Neurosurg Rev* 30: 40-8; discussion 48-9, 2007
- 14) Tokunaga K, et al: Transarterial approach for selective intravenous coil embolization of a benign dural arteriovenous fistula. Case report. *J Neurosurg* 99: 775-8, 2003
- 15) Medhi G, et al: Pial arteriovenous fistula: A clinical and neuro-interventional experience of outcomes in a rare entity. *Indian J Radiol Imaging* 30: 286-93, 2020