

3D-CTAが流入血管の同定に有用であった 仙骨部脊髄硬膜動静脈瘻の1例

大谷 啓太¹⁾ 佐藤 浩一²⁾ 花岡 真実²⁾ 松崎 和仁²⁾
山口 真司²⁾ 手島奈津美²⁾ 三宅 一²⁾ 仁木 均³⁾

1) 徳島赤十字病院 教育研修推進センター
2) 徳島赤十字病院 脳神経外科
3) 徳島赤十字病院 脳神経内科

要 旨

症例は72歳の女性，両下肢感覚障害，運動障害，腰痛，排便・排尿障害を主訴に当科へ救急搬送された．胸腰椎造影MRIでTh7～L4レベルに脊髄腫大と頸～腰髄に至るまでのflow voidを認め，CT angiographyで脊髄背面に異常な血管構造を認めた．脊髄硬膜動静脈瘻（dAVF）を疑い，Th5～L4レベルまでの脊髄血管造影を行うも明らかな動静脈奇形（AVM）を認めなかった．3D-CTAを再構築したところ左外側仙骨動脈から脊柱管内に続く血管を確認した．血管撮影で両側外側仙骨動脈より流入するS1レベルのdAVFを認め，33%NBCAを用いて血管内塞栓術（経皮的経動脈的塞栓術）を施行し，dAVFは消失した．術後，両下肢筋力は改善傾向で，リハビリ病院に転院した．シャント部位が明確でない場合，仙骨dAVFを疑うことが必要であり，その同定には3D-CTAが非常に有用であった．

キーワード：硬膜動静脈瘻（dAVF），膀胱直腸障害，仙骨部，3D-CTA，脊髄浮腫

はじめに

脊髄硬膜動静脈瘻（dural arteriovenous fistula, 以下，dAVF）は胸腰椎に好発し，その流入血管は肋間動脈または腰動脈であることがほとんどである．しかしながら，稀に内腸骨動脈や鎖骨下動脈の枝を流入血管とするものが存在する．これらの血管より流入するdAVFは，脊髄血管造影においてしばしば見落とされ得る．今回我々が経験した症例では，外側仙骨動脈より流入する仙骨部dAVFであり，その同定に3D-CTAが有用であったためここに報告する．

症 例

患 者：72歳，女性

主 訴：両下肢感覚障害，運動障害，腰痛，歩行困難，排便・排尿障害

既往歴：高血圧症，糖尿病

現病歴：某年5月末ベッドより転落，6月末から膀胱直腸障害，両下肢脱力，感覚障害，腰痛が出現した．同年7月末，5kgのゴミ出しでとった前傾姿勢から戻れなくなった．両下肢の痺れ，脱力が出現し歩行困難となったため救急要請し，当院救急外来へ搬送された．精査加療目的に当科へ入院した．

膀胱直腸障害，両下肢脱力，感覚障害，腰痛が出現した．同年7月末，5kgのゴミ出しでとった前傾姿勢から戻れなくなった．両下肢の痺れ，脱力が出現し歩行困難となったため救急要請し，当院救急外来へ搬送された．精査加療目的に当科へ入院した．

入院時現症：血圧177/88mmHg，脈拍92bpm，体温37.7℃，SpO₂ 97%（room air）．

意識清明（GCSE4V5M6），脳神経，両上肢，体幹部に異常を認めなかった．両下肢にMMT3の筋力低下と鼠経レベルより下の範囲で感覚障害を認めた．また，両下肢腱反射は高度に減弱していたが，Babinski反射は陰性であった．直腸診では肛門括約筋の弛緩，尿閉を認めた．

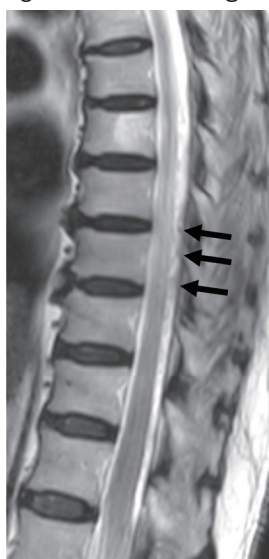
入院時検査所見：血算では特記すべき所見なく，生化学検査ではHbA1c 8.8%の糖尿病を認めた．髄液所見はキサントクロミー，初圧10cmH₂O，細胞数2個/μl，蛋白119mg/dl，糖77mg/dlと，蛋白の上昇を認めた．

画像検査所見：胸腰椎単純造影MRIではTh7～L4レベルにT2 high，造影で広範囲に増強効果，L1-3に強

い脊髄腫大を，同部の脊髄背側にflow voidを認めた (Fig. 1) . また，CT angiographyでは脊柱管内を蛇行しながら縦走する異常な血管像を認め，左Th9からAdamkiewicz動脈を認め，右Th10付近にシャントを疑う所見があり，脊髄AVMと考えた (Fig. 2) .

経過：入院3日目に全身麻酔下で脊髄血管造影を施行した．左Th9にAdamkiewicz動脈を確認したが，Th5～L4までに明らかな異常血管を認めず，大動脈造影，腰動脈造影，頭部血管撮影を追加したが異常を認めなかった．流入血管同定の為再び

Fig. 1 a 胸髄 T2 sagittal



橋髄背側にflow void, 脊髄にT2 high を認める.

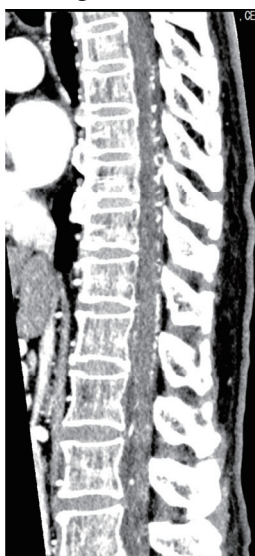
Fig. 1 b 全脊髄造影MR



頸胸髄に広範囲な増強効果, 腫大を認める.

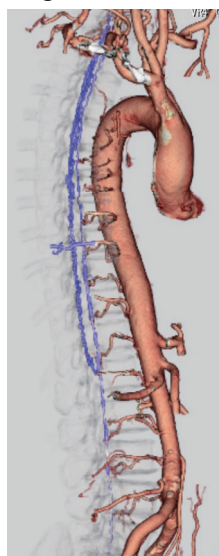
Fig. 1 脊髄MR

Fig. 2 a CTA



橋髄背側にflow voidを認める.

Fig. 2 b 3D-CTA



脊髄の異常血管を認め，左Th9からAdamkiewicz動脈を確認できるがシャント部位の同定困難.

Fig. 2 CTA

Fig. 3a 正面像



Fig. 3b 右側面像



Fig. 3c 骨とのfusion



外側仙骨動脈からS1付近から脊柱管内につながる血管が描出される。

Fig. 3 3D-CTA

3D-CTAを再構成したところ、左外側仙骨動脈から脊柱管内を縦走する血管を認め (Fig. 3)、仙骨部のdAVFが強く疑われた。入院8日目、全身麻酔下で血管内手術を行った。まず、両側内腸骨動脈造影を行ったところ、両側の外側仙骨動脈からS1レベルでAVシャントが描出され、脊柱管内へ流入し、縦走する血管を認め (Fig. 4, 5)、仙骨部dAVFと診断した。まず、右外側仙骨動脈にマイクロカテーテルを誘導し、33% n-butyl cyanoacrylate (NBCA) によるdAVF塞栓術 (経皮的経動脈的塞栓術) を行った (Fig. 6)。NBCAはシャントから流出静脈に少し入ったところまで到達し、シャントは消失した。左内腸骨動脈造影でもシャントは消失しており、両側ともに1か所のシャントに流入していたと考えられた。術後、膀胱直腸障害は残存したが、腰痛、感覚障害、下肢の運動障害は両側ともにMMT4程度にまで改善した。また、術後撮影した胸腰椎造影MRIでは、脊髄腫大は残存を認めるものの改善し、flow voidは消失した (Fig. 7)。第16病日、血管撮影で完全消失を再確認、第21病日、リハビリ目的に他院へ転院した。治療から約2ヶ月後、両下肢麻痺改善し、ADL自立、膀胱直腸障害も改善、完全導尿から自排尿で導尿不要となり、自宅復帰した。

考 察

脊髄血管奇形は100万人あたり5~10人と比較的稀な疾患で、そのうち、脊髄硬膜動静脈瘻 (dural arteriovenous fistula, 以下、dAVF) は60~80%を占める。胸腰椎に好発し、その流入血管は肋間動脈または腰動脈であることがほとんどである¹⁾。

DAVFは、脊髄硬膜に動静脈絡が形成されることで静脈圧亢進をきたし、脊髄静脈のうっ血による緩徐進行性の脊髄症状をきたす疾患であり、緩徐進行性の下肢運動麻痺、感覚障害、膀胱直腸障害などを来す^{1)~3)}。

脊髄MRI T2強調画像で脊髄内高信号とflow voidを認めた場合は本疾患を疑い、血管造影検査で動静脈シャントを同定することで確定診断となる。脊髄腫大部位とシャント部位は必ずしも一致しない。そしてその治療は血管内塞栓術と外科的遮断術があり、血管内塞栓術は粒子状のPVA (polyvinyl alcohol) や液性のNBCA (n-butyl cyanoacrylate)、コイルなどを用いて動静脈シャントを閉塞する。これは外科的遮断術に比べて低侵襲であるが、根治率は、血管内塞栓術25~75%vs外科的遮断術98%と、外科的遮断に劣ることが知られている^{1)・2)}。

Fig. 4a 右内腸骨動脈撮影

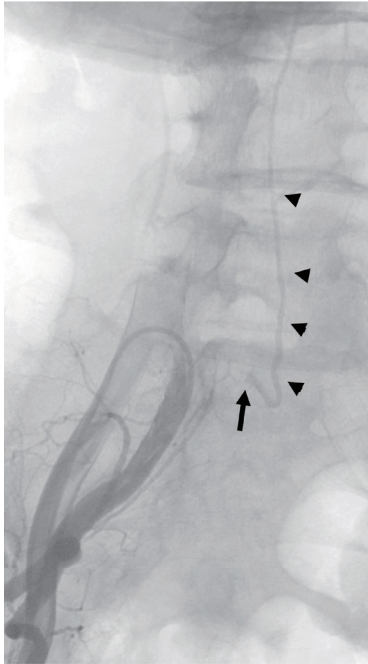
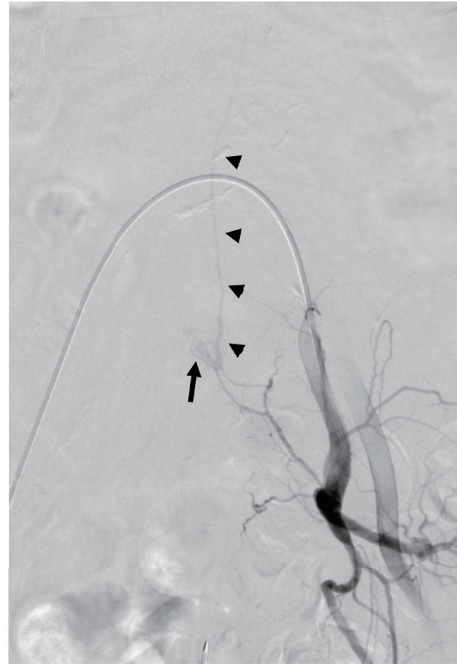


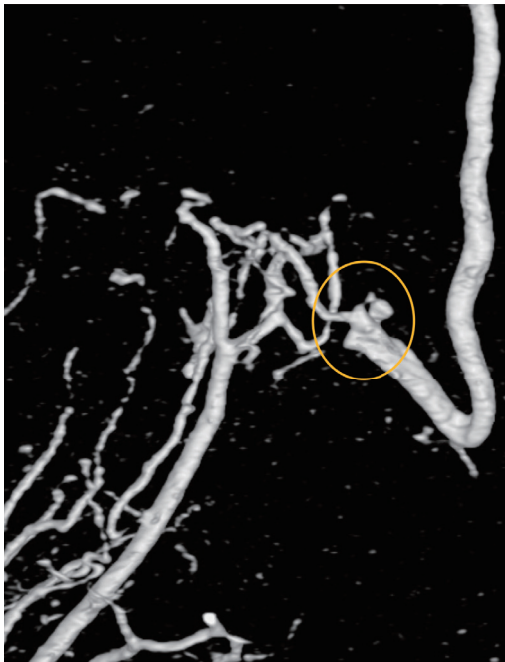
Fig. 4b 左内腸骨動脈撮影



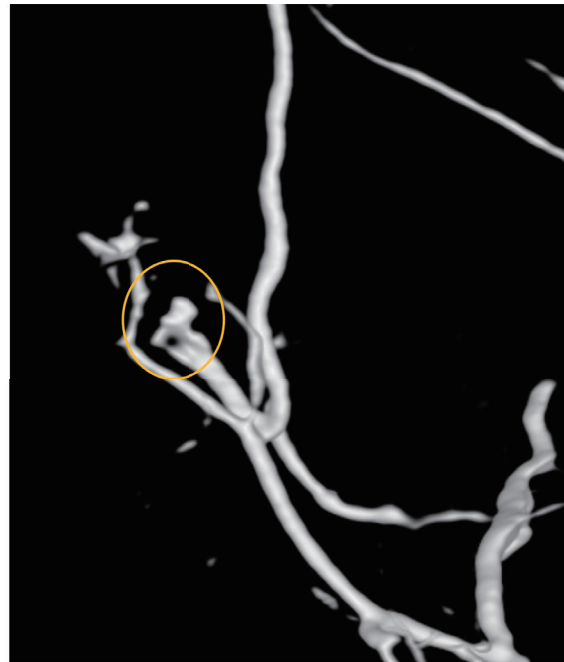
両側外側仙骨動脈からシャント（矢印）が描出され、上行性にドレナージする（矢頭）。

Fig. 4 両側内腸骨動脈撮影（正面像）

右外側仙骨動脈3D撮影



左外側仙骨動脈3D撮影



両側から1カ所にシャント（丸印）を認め、脊柱管内に入った後、上行。

Fig. 5 3D-DSA

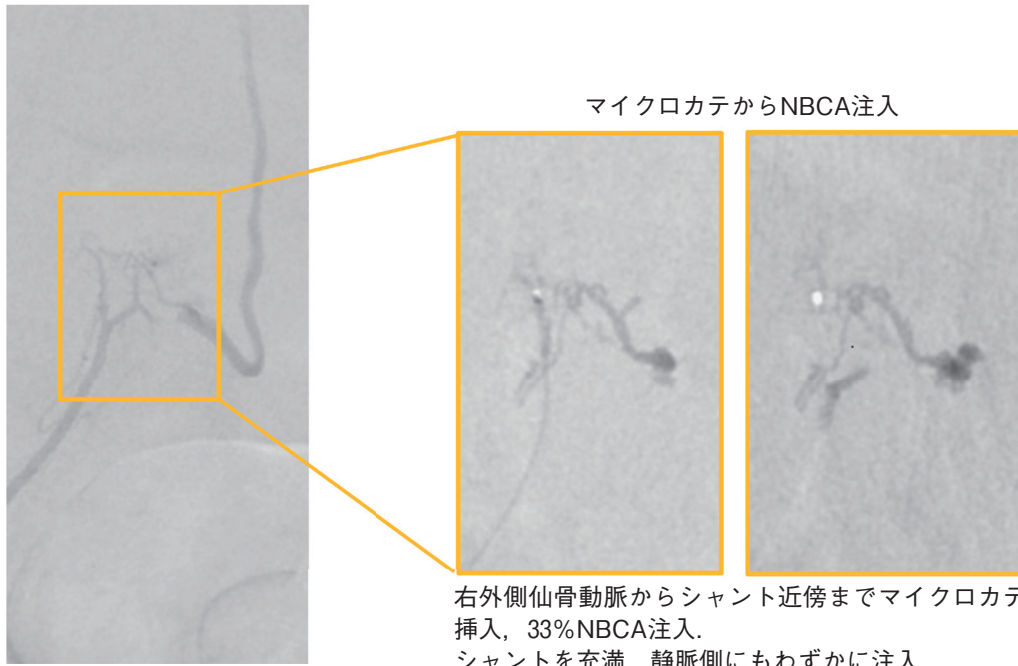


Fig. 6 右外側仙骨動脈撮影(正面像)

Fig. 7 a 胸髄 T2 sagittal view



Flow void の消失を認める.

Fig. 7 脊髄MR

Fig. 7 b 全脊髄造影MR sagittal view



増強効果の縮小を認める.

症候学的な予後は、治療までの罹病期間が長い例、症状が強い例、高齢者で特に改善率が劣る。例えば、発症から治療開始まで13か月以上経過した群は13か月以内に治療を開始した群に比べてより重症度が高いことが報告されている^{2)・3)}。特に、仙骨部dAVFでは治療までの期間が長くかかることが多く、他部位に比べて転帰が不良である^{3)・5)}。仙骨部dAVFが脊髄dAVFの約10%と非常に稀で、両側の外側仙骨動脈、正中仙骨動脈がfeederとなるため、通常の脊髄血管造影においてしばしば見落とされ得る^{3)・5)}。

本症例でも、2か月前より進行性の下肢脱力、膀胱直腸障害を認め、脊髄MRIで脊髄腫大、flow voidを認めたため当初よりdAVFを疑った。しかしながら、初回の血管造影検査では、肋間動脈からのAVMは発見されず、また、大動脈撮影、腰動脈、総腸骨動脈撮影でも明らかなAVシャントを認めず、治療に至らなかった。脊髄血管造影で明らかなシャントが存在しなかったことから、胸腰髄レベルに重点を置き、3D-CTAを仙骨部レベルまで再構成することで、外側仙骨動脈が流入血管であると同定し、血管内手術で根治した。治療から約2か月で麻痺症状の改善、膀胱直腸障害の改善を認め、自宅復帰することができ、比較的早急に治療が行えたと考えている。

近年、3D-CTAの精度向上により胸腰髄レベルの前脊髄動脈は描出可能となり、動静脈シャントのおおよその位置も同定できるようになっている。3D-CTAは少量の造影剤で全脊髄レベルの血管を短時間で描出することができる。さらに、CTAは血管の構造を骨構造と重ねて観察することも容易であり、AVFの局在診断にも有用である⁶⁾。以上のことから、3D-CTAは、dAVFにおける治療前の動静脈短絡のスクリーニングに非常に有用であると考えられた。

まとめ

脊髄血管造影で同定し得なかったシャントの局在診断に3D-CTAが有用であった仙骨部dAVFの1例を報告した。脊髄dAVFを疑った際には3D-CTAの詳細な検討が確実な治療につながると考えられた。

利益相反

本論文に関して、開示すべき利益相反なし。

文 献

- 1) 矢野俊介：【神経症候群（第2版）－その他の神経疾患を含めて－】血管障害 その他 脊髄血管障害、循環障害 脊髄動静脈奇形. 日本臨牀 2013；別冊神経症候群 I：412-6
- 2) 桑山直也，久保道也，遠藤俊郎，他：【脳脊髄動静脈奇形の診断・治療の進歩】わが国における硬膜動静脈瘻の治療の現状. 脳神外ジャーナル 2011；20：12-9
- 3) Cenzato M, Debernardi A, Stefani R, et al: Spinal dural arteriovenous fistulas: outcome and prognostic factors. Neurosurg Focus 2012；32：E11
- 4) Alvarado AM, Haussen DC, Ebersole K, et al: Embolization of Sacral Dural Arteriovenous Fistulas: A Case Series and Literature Review. Interv Neurol 2017；6：73-81
- 5) 笹森徹，飛驒一利，浅野剛，他：仙骨部硬膜動静脈瘻の検討. 脊髄外科 2011；25：81-3
- 6) 宮崎良平，村田英俊，佐藤充，他：脊髄硬膜動静脈瘻に対する効率的な画像診断の工夫 脳卒中の外 2020；48：42-8

A case of sacral dural arteriovenous fistula and its shunt observed on three-dimensional computed tomography angiography

Keita OTANI¹⁾, Koichi SATOH²⁾, Mami HANAOKA²⁾, Kazuhito MATSUZAKI²⁾
Tadashi YAMAGUCHI²⁾, Natsumi TESHIMA²⁾, Hajimu MIYAKE²⁾, Hitoshi NIKI³⁾

1) Post-graduate Education Center, Tokushima Red Cross Hospital

2) Division of Neurosurgery, Tokushima Red Cross Hospital

3) Division of Neurology, Tokushima Red Cross Hospital

A 72-year-old woman was ambulated to our hospital with chief complaints of disorders in sensation of both lower limbs, movement, and defecation/urination as well as low back pain. Contrast-enhanced magnetic resonance imaging revealed spinal cord enlargement from the Th7 to L4 levels and flow void from the cervical cord to the lumbar cord. Computed tomography angiography (CTA) also showed an abnormal vascular structure on the back of the spinal cord. We suspected the presence of dural arteriovenous fistulas (dAVF) and performed spinal angiography from Th5 to L4, but we could not identify any such arteriovenous malformation. Therefore, we performed a second three-dimensional CTA (3D-CTA) and confirmed that a blood vessel extended from the left lateral sacral artery to the spinal canal. After that, we performed spinal angiography again and identified that dAVF fed from both lateral sacral arteries. We performed endovascular embolization by injecting 33% N-butyl-2-Cyanoacrylate (NBCA) to the fistulas and confirmed that dAVF disappeared. The muscle strength of both lower limbs improved after the operation, and the patient was transferred to a rehabilitation hospital.

The sacral dAVF should be assumed when the blood-supplying artery cannot be identified on standard spinal angiography. Our findings show that 3D-CTA is useful for the diagnosis of sacral dAVF and for identifying the blood-supplying artery.

Key words: dural arteriovenous fistula at the craniocervical junction, myelopathy, arteriovenous fistula ligation, vertebral artery, ascending pharyngeal artery

Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal 26 : 128-134, 2021
