

## 第1頸椎レベルに発生した椎骨動静脈瘻の2例

高橋 宏典<sup>1)\*</sup>, 赤路 和則<sup>1)</sup>, 吉田 啓佑<sup>1)</sup>, 木幡 一磨<sup>2)</sup>, 堀越 知<sup>2)</sup>

<sup>1)</sup> 公益財団法人脳血管研究所 附属美原記念病院 脳神経外科

<sup>2)</sup> 公益財団法人脳血管研究所 附属美原記念病院 脳卒中科

**要約**：【緒言】椎骨動静脈瘻は椎骨動脈と静脈との間に直接シャントが形成される比較的稀な疾患で、瘻孔の位置は特発性においては第1頸椎レベルが多いとされている。

【症例】症例1は52歳女性で、左延髄外側梗塞後に拍動性耳鳴が出現した。第1頸椎レベルに右椎骨動静脈瘻を認めた。症例2は43歳女性で、未破裂脳動脈瘤の外來経過観察中に突然右拍動性耳鳴が出現した。第1頸椎レベルに右椎骨動静脈瘻を認めた。2例とも脳血管内手術にて安全で確実な親動脈閉塞治療が施行された。術後は右椎骨動脈完全閉塞、右椎骨動静脈瘻消失を認め、拍動性耳鳴りは消失した。

【考察】椎骨動脈は第1頸椎レベルで外弾性板が減少するため、破綻して椎骨動静脈瘻が生じやすいと推測される。

【結語】第1頸椎レベルに発生した特発性椎骨動静脈瘻の2症例を報告した。

キーワード：椎骨動静脈瘻、親動脈閉塞、椎骨動脈

### 緒言

椎骨動静脈瘻は椎骨動脈と静脈との間に直接シャントが形成される比較的稀な疾患で、医原性、外傷性、特発性に分類されるが、特発性のものが約半数を占める(1)。瘻孔の位置は特発性においては第1頸椎レベルが多いとされている(1)。当院で経験した第1頸椎レベルに発生した椎骨動静脈瘻の2例を報告する。

本論文の投稿に関しては、2例とも患者本人より同意取得済みである。

#### 症例1

患者：52歳女性

主訴：拍動性耳鳴

現病歴：入浴中に咳をした後に左頸部違和感と左半身失調を自覚して、他院へ救急搬送された。頭部Magnetic resonance angiography (MRA)で左椎骨動脈解離が疑われたため、翌日当院転院となった。来院時には意識は清明で、左顔面のしびれ、めまい、左半身失調、嚥下障害を認めた。頭部MRIで左延髄

外側に新鮮梗塞、頭部MRAで左椎骨動脈のpearl and string signを認めた。保存的治療で症状は徐々に軽快、左顔面のしびれのみが残存した。入院25日後、退院となった。発症2ヶ月後より拍動性耳鳴りが出現し、徐々に増悪した。発症3ヶ月後の頭部MRAでは、左椎骨動脈のpearl and string signが改善しており、8ヶ月後のMRAでは、右椎骨動静脈瘻を認めた(Figure 1a)。脳血管撮影を施行したところ、右椎骨動脈撮影で瘻孔遠位の造影が不良であり、左椎骨動脈撮影で椎骨動脈合流部から逆行性に瘻孔が造影された(Figure 2)。

治療および経過：右椎骨動静脈瘻に対し全身麻酔下で脳血管内手術を施行した。右上腕動脈から、6Fr Envoy catheter (Johnson & Johnson, New Brunswick, NJ, USA)を右椎骨動脈に留置して、Excelsior 1018 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA)とEchelon 10 (Medtronic, Minneapolis, MN, USA)を右椎骨動脈瘻孔遠位部まで誘導した。まずMicrocatheterを誘導して瘻孔のみの閉塞を試みたところ、静脈側スペースが大きいため安定したcoil留置が困難であった。右椎骨動脈が逆流していたため右椎骨動脈の親動脈閉塞は安全であり確実に根治できると判断して、瘻孔の遠位から近位まで計35本のcoilで右椎骨動脈を塞栓した(Figure 3a)。右椎骨動脈は閉塞され、右椎骨動静脈瘻は消失した。左椎骨動脈撮影で脳底動脈が描出されるようになった(Figure 3b)。術後、拍動性耳鳴りは消失した。数日間軽度の右後頭部痛を認めたが改善した。13年間経過したが再発はない(Figure 1b: 術後6週間, 1c: 術後6ヶ月)。

\* 慶応義塾大学 脳神経外科  
160-8582 東京都新宿区信濃町35  
Tel: 03-3353-1211 (代表)  
E-mail: emeth4123@gmail.com  
2022年10月27日受理

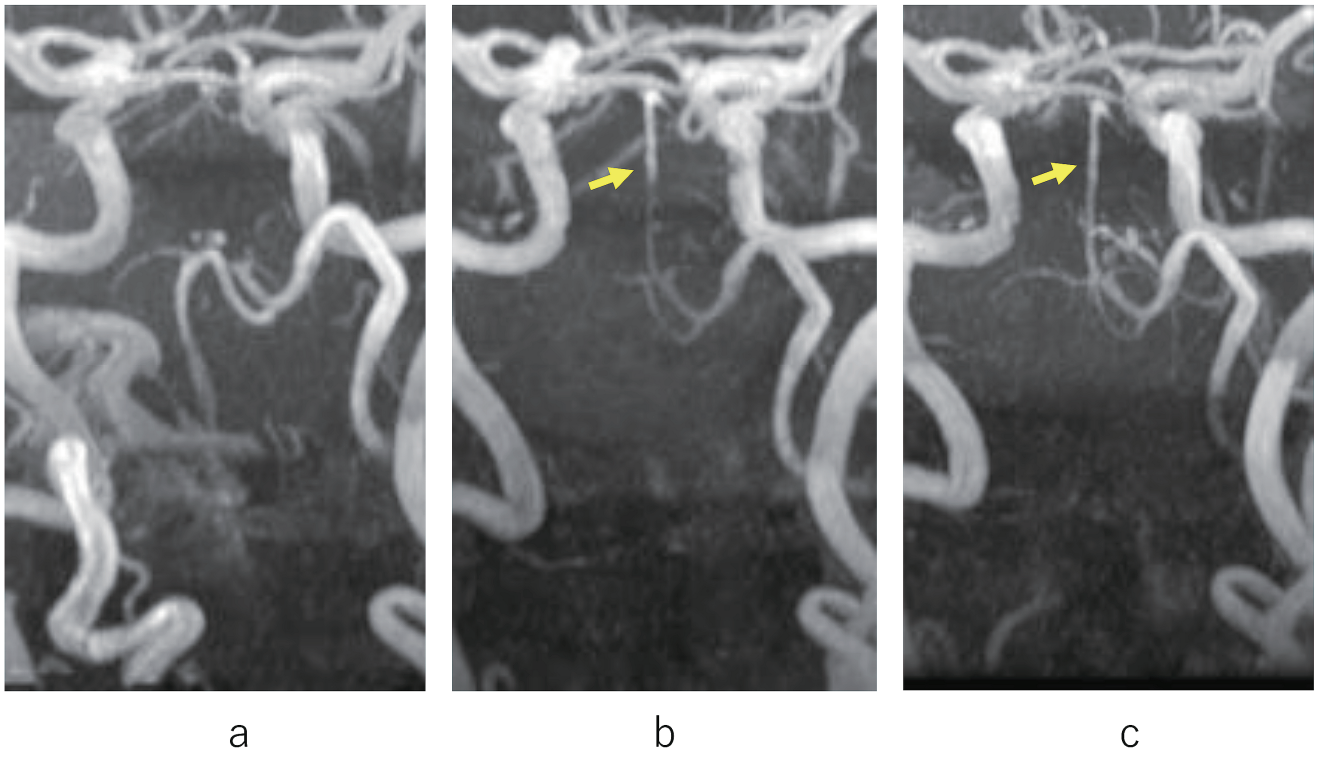


Figure 1. 症例1のMRA (a: 術前, b: 術後6週間, c: 術後6ヶ月)

術後、椎骨動静脈瘻は消失、脳底動脈 (矢印で示す) が描出されている。椎骨動静脈瘻再発を認めない。

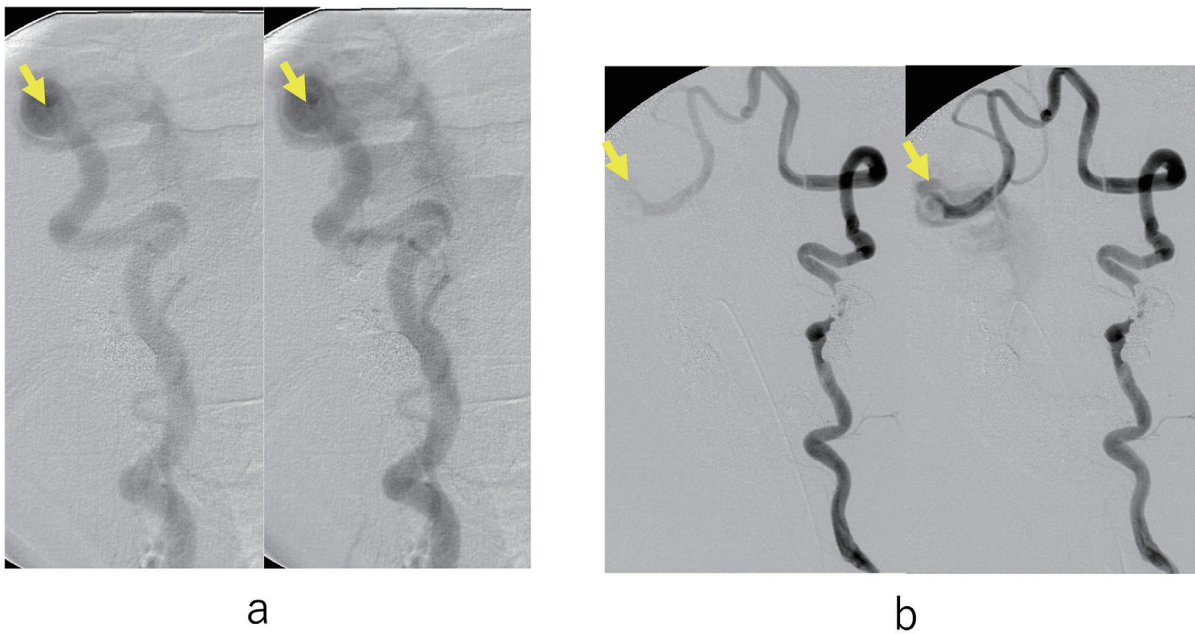


Figure 2. 症例1の脳血管撮影正面像 (a: 右椎骨動脈撮影, b: 左椎骨動脈撮影)

右椎骨動脈撮影で右椎骨動静脈瘻を認め、瘻孔 (矢印で示す) 遠位の造影不良である。左椎骨動脈撮影で椎骨動脈合流部から逆行性に瘻孔が造影される。

## 第1頸椎レベルに発生した椎骨動静脈瘻の2例

### 症例2

患者：43歳女性

主訴：拍動性耳鳴

現病歴：未破裂右内頸動脈瘤に対し外来にて経過観察していた。

子供と格闘後に突然に右拍動性耳鳴を自覚（頭部打撲の記憶はないとのこと）して、当院を受診した。発症4日後、頭部MRA上で右椎骨動静脈瘻を認めて（Figure 4a）、脳血管撮影を施行した。右椎骨動脈撮影で瘻孔遠位の造影が不良であり、

左椎骨動脈撮影で椎骨動脈合流部から逆行性に瘻孔が造影された（Figure 5）。

治療および経過：右椎骨動静脈瘻に対し、全身麻酔下で脳血管内手術を施行した。右大腿動脈から右椎骨動脈へ7Fr Optimo ballon catheter（東海メディカルプロダクツ，愛知）を留置した後に、Lantern（株式会社メディコスヒラタ，大阪）とEchelon 10（Medtronic, Minneapolis, MN, USA）を右椎骨動脈瘻孔遠位部まで誘導した。まずMicrocatheterを誘導して瘻

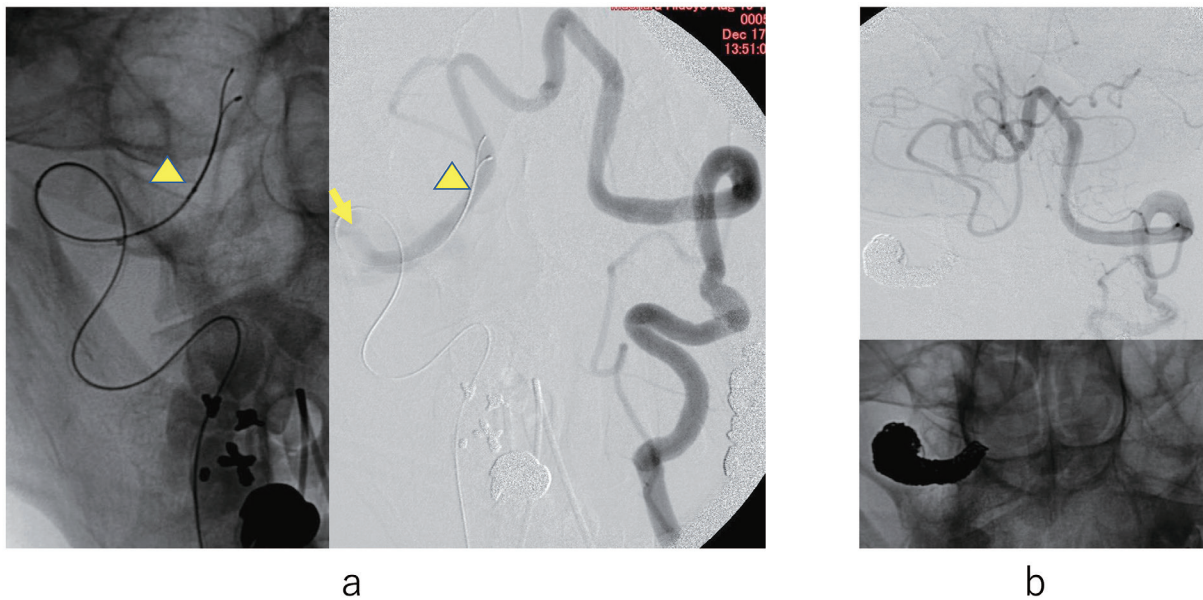


Figure 3. 症例1の血管内手術時左椎骨動脈撮影正面像 (a: 術中, b: 術後)

microcatheter2本を用いて計35本のcoilで右椎骨動脈を塞栓した。矢印で示した瘻孔の遠位から近位まで詰め戻るように塞栓した。矢頭はmicrocatheterを示す。

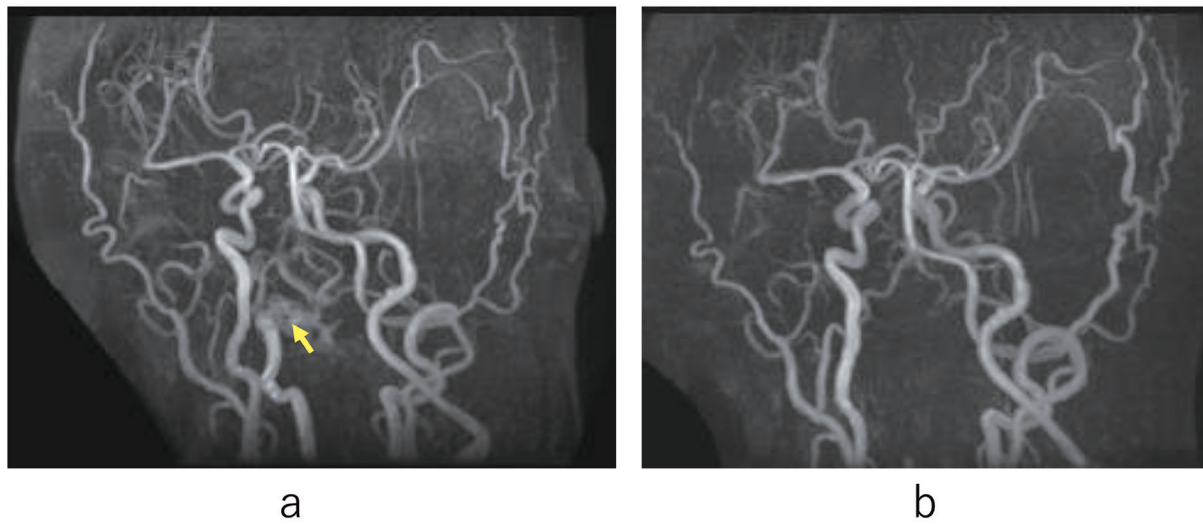


Figure 4. 症例2のMRA (a: 術前, b: 術後)

術後、椎骨動静脈瘻は消失している。矢印は椎骨動静脈瘻の瘻孔を示す。

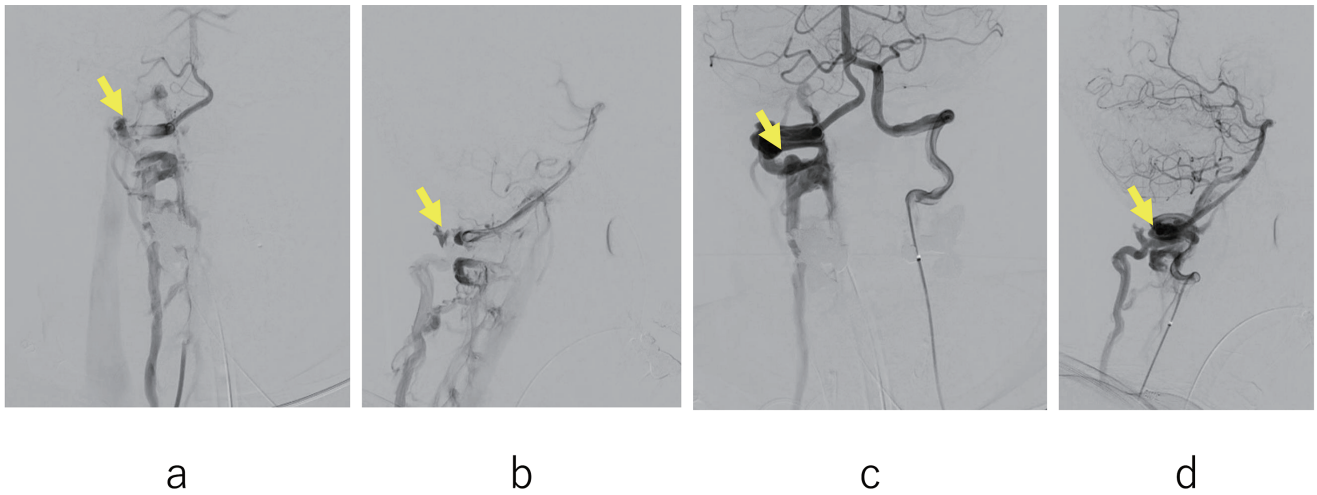


Figure 5. 症例2の脳血管撮影像 (a: 右椎骨動脈撮影正面像, b: 右椎骨動脈撮影側面像, c: 左椎骨動脈撮影正面像, d: 左椎骨動脈撮影側面像) 右椎骨動脈撮影で右椎骨動脈狭窄を認め、狭窄孔 (矢印で示す) より遠位が造影不良である。左椎骨動脈撮影で椎骨動脈合流部から逆行性に狭窄孔が造影される。

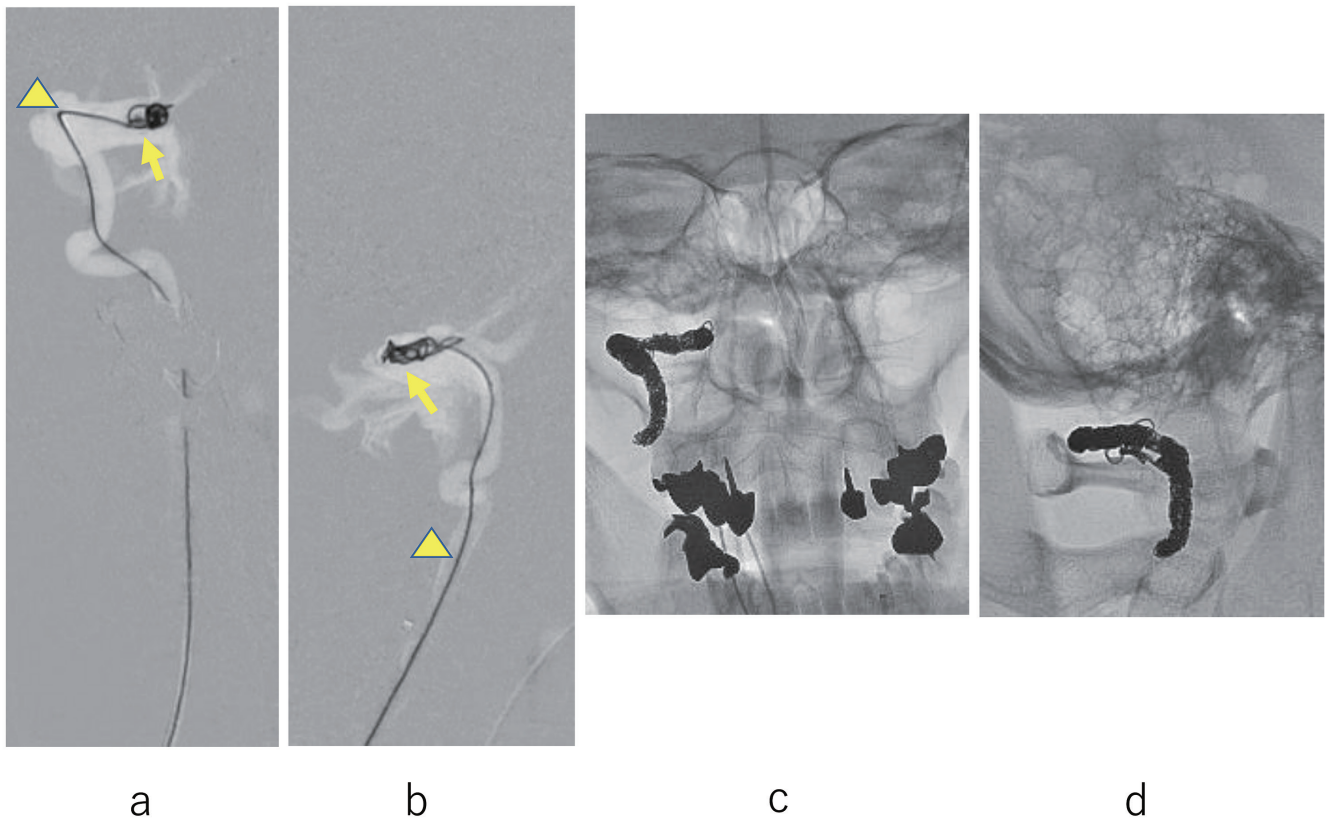


Figure 6. 症例2の血管内手術時画像 (a: 術中右椎骨動脈撮影正面像, b: 術中右椎骨動脈撮影側面像, c: 術後X-P正面像, d: 術後X-P側面像) microcatheter2本を用いて狭窄孔の遠位から近位まで、計20本のcoilで右椎骨動脈を塞栓した。矢印で塞栓部(coil), 矢頭でmicrocatheterを示す。

## 第1頸椎レベルに発生した椎骨動静脈瘻の2例

孔のみの閉塞を試みたところ、静脈側スペースが大きいため安定したcoil留置が困難であった。右椎骨動脈が逆流していたため右椎骨動脈の親動脈閉塞は安全であり確実に根治できると判断した。椎骨動脈を閉塞させながら瘻孔遠位へanchorとしてpenumbra occlusion device (POD)(Penumbra, Inc., Alameda, CA, USA)を挿入後に、瘻孔遠位から近位まで計20本のcoilで右椎骨動脈を塞栓した(Figure 6)。右椎骨動脈は閉塞され、右椎骨動静脈瘻は消失した。術後、右拍動性耳鳴りは消失し、2年間経過したが再発はない(Figure 4b)。

### 考 察

特発性椎骨動静脈瘻の瘻孔の位置は第1頸椎レベルのものが約34%を占め、これは医原性や外傷性のものに比べて高い割合である(1)。特発性のもものでは瘻孔が外因なく発生するため、血管自体に瘻孔を生じやすい特徴があると考えられる。椎骨動脈や内頸動脈は、弾性動脈である大動脈とは異なる筋性動脈であり、硬膜外では外弾性板と内弾性板を有しているが、硬膜内では外弾性板がない(2)。増岡ら(2)は、内頸動脈の外弾性板は海綿静脈洞水平部において消失しており、動脈硬化性狭窄病変の好発部位と一致すると報告している。Wilkinsonら(3)の報告によれば、椎骨動脈の外弾性板が硬膜貫通部1cm中枢側から急激に減少し、硬膜貫通後1.5cmまでには消失するとしている。自験例2例では、硬膜貫通部のすぐ中枢側に瘻孔を認め、外弾性板が急激に減少する部位に瘻孔が生じたと考えられた。橋本ら(4)は、Neurofibromatosis type Iに合併した椎骨動静脈瘻の症例を報告し、椎骨動静脈瘻と動脈脆弱性との関連を示唆している(4)。外弾性板が減少する第1頸椎レベルでは、椎骨動脈が脆弱であるために、血管壁が破綻して椎骨動静脈瘻が生じやすい可能性があると考えられた。

椎骨動脈は、日常の頸部の回転で伸展されることが多く、内弾性板の断裂から始まる動脈解離が起こりやすい(5)。本研究1例目は、椎骨動脈解離による脳梗塞の経過観察中に対側の椎骨動静脈瘻を発症した。2例目も激しく動いた直後に発症してお

り、画像上の証拠はないが発症様式が解離の存在を思わせる。2例とも、外弾性板が減少する第1頸椎レベルで、内弾性板の断裂から始まる椎骨動脈解離が起こり、椎骨動静脈瘻が生じたのかもしれない。

椎骨動静脈瘻の治療においては親動脈閉塞が選択される割合が大きく、中でも特発性に至っては82%もの症例で親動脈閉塞が選択されている(1)。瘻孔のみの閉塞が理想的である一方で、これほど多くの症例で親動脈閉塞を選択せざるを得ない理由は、椎骨動静脈瘻の解剖学的特徴にあると思われる。内頸動脈海綿静脈洞瘻での海綿静脈洞とは異なり椎骨動静脈瘻では静脈側スペースが大きく、瘻孔のみの閉塞が困難である。自験例2例でも、Microcatheterを誘導して瘻孔のみの閉塞を試みたが、安定したcoil留置が困難であった。椎骨動脈合流部から同側椎骨動脈を逆流して瘻孔へ盗血を認めていたため右椎骨動脈の親動脈閉塞は安全であり、むしろ瘻孔への盗血が消失することにより脳血流を確実に改善できると判断して施行した。

### 結 語

第1頸椎レベルに発生した椎骨動静脈瘻の2例を報告した。

### 利益相反の開示

著者ら全員、本論文の発表に関して、開示すべき利益相反はない。

### 文 献

1. Aljohbe A, Sorenson TJ, Bortolotti C et al: Vertebral Arteriovenous Fistula: A Review Article. World Neurosurg 2019; **122**: e1388-97.
2. 増岡徹, 林央周, 堀恵美子ほか: 頭蓋内外内頸動脈の血管構造に関する検討. 脳卒中の外科 2007; **35**: 30-3.
3. Wilkinson IMS: The vertebral artery. Extracranial and intracranial structure. Arch Neurol 1972; **27**: 392-6.
4. 橋本孝朗, 大橋智生, 稲次忠介ほか: Neurofibromatosis type Iに合併した椎骨動静脈瘻の1例. 脳神経外科速報 2007; **17**: 91-5.
5. 水谷徹: 特集 昭和大学医学部脳神経外科学教室の紹介と得意とする領域 解離性脳動脈瘤の病理, 病態と治療 - Part I 病理, 病態と治療の考え方について -. 昭和医学会誌 2014; **74**: 482-90.

## Case Report: Two Cases of Vertebral Arteriovenous Fistula at the Level of the First Cervical Vertebra

Hironori Takahashi <sup>1)\*</sup>, Kazunori Akaji <sup>1)</sup>, Keisuke Yoshida <sup>1)</sup>, Kazuma Kowata <sup>2)</sup>, Tomo Horikoshi <sup>2)</sup>

<sup>1)</sup> *Department of Neurosurgery, Institute of Brain and Blood Vessels Mihara Memorial Hospital*

<sup>2)</sup> *Department of Stroke, Institute of Brain and Blood Vessels Mihara Memorial Hospital*

**Abstract:** A vertebral arteriovenous fistula, wherein a direct shunt forms between a vertebral artery and a vein, is relatively rare. In idiopathic cases, the fistula is often located on the atlas. Herein, two cases of idiopathic vertebral arteriovenous fistula on the atlas are reported. Case 1 was a 52-year-old woman. The patient experienced pulsatile tinnitus after infarction of the left lateral medulla oblongata, and a right vertebral arteriovenous fistula was observed on the atlas. Case 2 was a 43-year-old woman. The patient had an unruptured cerebral aneurysm at the internal

cerebral artery and experienced sudden pulsatile tinnitus in the right ear. Additionally, a right vertebral arteriovenous fistula was observed on the atlas. The degeneration of the external elastic lamina at the atlas likely causes vertebral artery rupture and vertebral arteriovenous fistula. Safe and reliable parent artery occlusion therapy was chosen in both cases. After therapy, the right vertebral artery was completely occluded, and the right vertebral arteriovenous fistula and pulsatile tinnitus disappeared.

**Key Words:** vertebral arteriovenous fistula, parent artery embolization, vertebral artery

---

\* Department of Neurosurgery, Keio University School of Medicine, 35 Shinanomachi, Shinjuku-ku, Tokyo 160-8582, Japan  
Tel: +81-3-3353-1211  
E-mail: emeth4123@gmail.com