

Spontaneous Direct Carotid Cavernous sinus Fistula (CCF) の1例

瓢子敏夫、鈴木知毅、片岡丈人、中村順一
下道正幸*、徳田禎久*、末松克美**

A Case of Spontaneous Direct Carotid Cavernous sinus Fistula

Toshio HYOGO, Tomoki SUZUKI, Taketo KATAOKA, Jun-ichi NAKAMURA,
Masayuki SHITAMICHI*, Sadahisa TOKUDA*, Katsumi SUEMATSU**

Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital, Sapporo, Japan,

*Teishinkai Hospital, Sapporo, Japan and

**Hokkaido Brain Research Foundation, Sapporo, Japan.

Summary: We reported a case of spontaneous direct carotid cavernous fistula. He was treated by endovascular therapeutic method. CCF was embolized with three detachable balloons, preserving the carotid artery flow. Exophthalmus and chemosis were markedly improved after the balloon embolization of the superior ophthalmic vein. We added coil embolization for the residual arteriovenous shunting and the CCF was completely occluded. His cranial bruit was appeared again one month after the embolization and three months follow up angiogram revealed the recanalization of the CCF. Recurrence of the ophthalmological sign was not detected and no additional treatment was performed. His cranial bruit was disappeared 8 months after the embolization and 10 months follow up angiogram revealed spontaneous complete occlusion of the CCF. His clinical course and the treatment of the spontaneous direct CCF were discussed.

Key words:

- carotid cavernous fistula
- spontaneous CCF
- detachable balloon
- coil embolization
- endovascular surgery

1. はじめに

内頸動脈と海綿静脈洞との直接的な動静脈短絡、すなわち direct carotid cavernous sinus fistula (CCF) は、外傷性 CCF に代表され、detachable balloon による治療が根治的になされている²⁾³⁾⁸⁾⁹⁾。

一方、一般に特発性 CCF は、海綿静脈洞部の硬膜動静脈奇形が主なその原因疾患であり、内頸動脈、外頸動脈の硬膜枝から海綿静脈洞への動静脈短絡がその病態で、その治療法も外傷性 CCF とは根本的に異なる。

Barrow は特発性 CCF を4つの type に分類し、その

中で、内頸動脈と海綿静脈洞との直接的な動静脈短絡を呈するのを type A としており¹⁾、外傷性以外にも direct CCF を呈する病態があることを示唆している。我々は、軽微な外傷を契機として発症した direct shunt を有する特発性 CCF の一例を経験したので、その治療、臨床経過について報告する。

2. 症 例

1. 発症及び経過

症例：19歳男性。1990.7.28 オートバイの後部座席から、発進時に後方へ転倒、後頭部を打撲し、近医を受診。

頭蓋単純写、CT上異常を認めず、頸椎捻挫の治療を受けた。この時すでに左外転神経マヒを指摘されている。受傷から約1か月後に、左眼球突出、眼球結膜浮腫が出現し、脳血管造影が施行され、左側 CCF と診断され、1990.11.19に治療のため当科入院となった。

2. 入院時所見

意識は清明で、身体的所見としては、左眼球突出、軽度左眼球結膜浮腫が認められ、聴診にて左眼窩に血管雑音を認めた。神経学的検査では、左外転神経マヒ、左聴力低下を認めた。

既往歴として、小学生の時に左聴力低下を指摘されており、中学生の時に左外転神経マヒを指摘されている。眼球突出の既往はなく、今回が初めてである。

3. 神経放射線学的所見

CT上は、左側眼球突出と拡張した左上眼静脈が認められ、MRIでは、これに加えて、左側海綿静脈洞の拡大が認められた。脳血管造影では、左内頸動脈造影にて、C4 portion から cavernous sinus への high flow arteriovenous shunting が認められ、拡張した左 superior ophthalmic vein, 左側 inferior petrosal sinus に draining していた (Fig. 1)。なお外頸動脈は CCF に全く関与していなかった。(Fig. 2)。

以上より左側 direct CCF と診断した。外傷を契機として発症しているが、その受傷機転、受傷部位が外傷性 CCF の状況と異なること、また、受傷前からの左外転神経マヒ、左聴力低下が存在していることから、CCF は受傷前から存在していたものと思われ、特発性 direct CCF と診断した。

前医で行った balloon occlusion test では、15分間の閉塞にて、構音障害と右側半身知覚障害が出現。閉塞時の

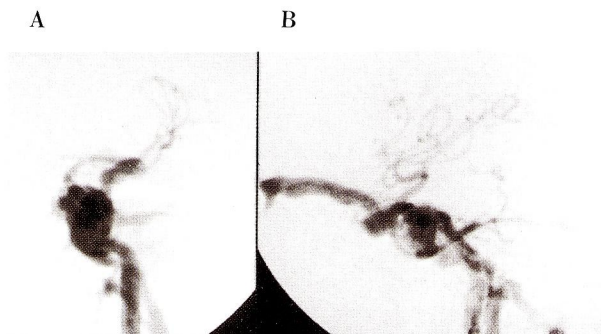


Fig.1 A : frontal view, B : lateral view ; Left internal carotid angiogram demonstrated direct carotid cavernous arteriovenous fistula draining into ipsilateral dilated superior ophthalmic vein and inferior petrosal sinus.

^{99m}Tc -HMPAO SPECT では⁷⁾、左大脳半球の血流低下が認められ、occlusion intolerant と診断されている (Fig.3)。

Detachable balloon による瘻孔の閉鎖が、第一選択の治療と考え¹⁾⁶⁾、血管内手術による塞栓術を計画した。

4. 血管内手術による塞栓術

最終的に計3回の塞栓術を行った。

A. 1990.11.21 塞栓術第1回目

左 ICA に 8F の guiding catheter を挿入し、detachable balloon を誘導した。使用した detachable balloon



Fig.2 Left external carotid angiogram (lateral view) demonstrated no vascular supply to the carotid cavernous fistula.

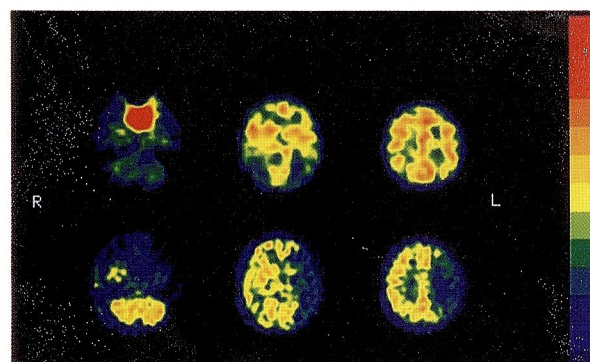


Fig.3 Upper line : ^{133}Xe SPECT at the resting state, lower line : ^{99m}Tc HM-PAO SPECT during the balloon occlusion test of the left internal carotid artery ; ^{133}Xe SPECT showed symmetrical cerebral blood flow at the resting state. ^{99m}Tc HM-PAO SPECT during the balloon occlusion test demonstrated a marked hypoperfusion area at the left MCA territory.

system は Ingenor 社製 gold valve balloon で、2F/3F の delivery catheter を使用した。Balloon の充填には 180mg I/ml に希釈した Iopamidol を使用した。No 17 を 0.2ml で後上方の位置に、No 9 を 0.8ml で、側方の位置でそれぞれ detach した (Fig. 4)。Balloon は、拡張した cavernous sinus 内に位置し、瘻孔の閉鎖には、直接関係しなかった。長時間の procedure になったため、導出静脈の閉塞、及び flow pattern に変化のないことを確認して、第 1 回目の塞栓術を終了した。

術後、神経症状に変化はなく、chemosis は幾分軽快した。

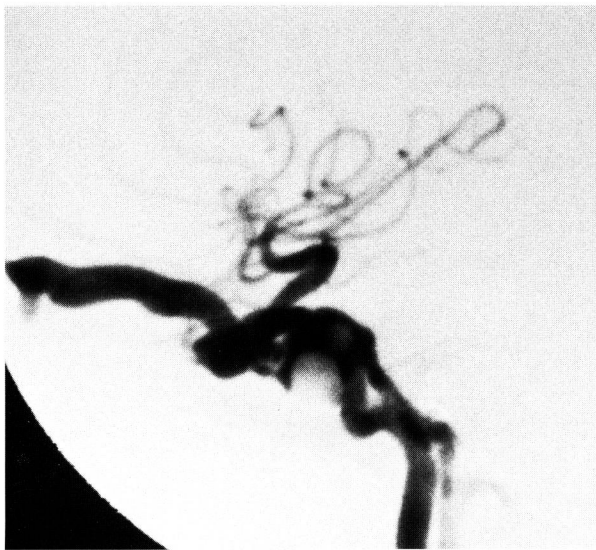


Fig.4 Left internal carotid angiogram (lateral view) at the end of the first balloon embolization showed two detached balloons in the cavernous sinus and CCF was still remained.

B. 1990.11.28 塞栓術第 2 回目

1 週間後に 2 回目の塞栓術を施行した。前回到留置した balloon を支持として、瘻孔の閉鎖を試みた。Gold valve balloon, No 16, No 17 での閉鎖を試みるも、誘導する catheter の stiffness が支障となり cavernous sinus 内に誘導できなかった。

先端の柔らかい catheter で誘導する意味で、Balt 社製 Magic catheter と、同じく Balt 社製 No 2, latex balloon を使用した。うまく cavernous sinus 内へ誘導でき、180mg I/ml の造影剤 0.3ml で inflate し、detach した。内頸動脈の瘻孔は思ったより大きく、0.2ml の volume では shunting の大部分が残存する形となり、また 0.4ml では瘻孔より balloon の一部が突出して内頸動脈

が狭窄する形となった。0.3ml の volume では superior ophthalmic vein への anterior draining root が完全に閉塞され、inferior petrosal sinus への posterior draining root が少し描出されたが、その flow は volume, velocity とも、著明に低下していた (Fig. 5)。内頸動脈の狭窄を避けることを優先し、この volume での detach を決断した (Fig. 6)。

術後、exophthalmus, chemosis は著明に改善したが、血管性雑音はあまり変化なかった。また、左外転神経マ

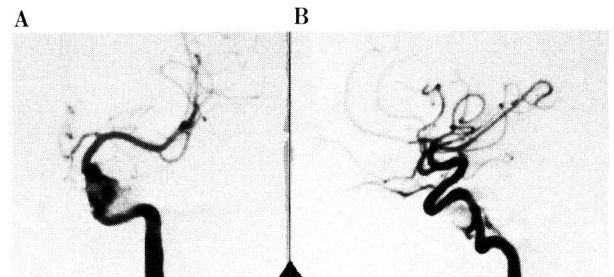


Fig.5 A : frontal view , B : lateral view ; Left internal carotid angiogram at the end of the second balloon embolization demonstrated partial obliteration of the CCF, superior ophthalmic vein was completely obliterated but remaining arteriovenous shunting was draining into inferior petrosal sinus.

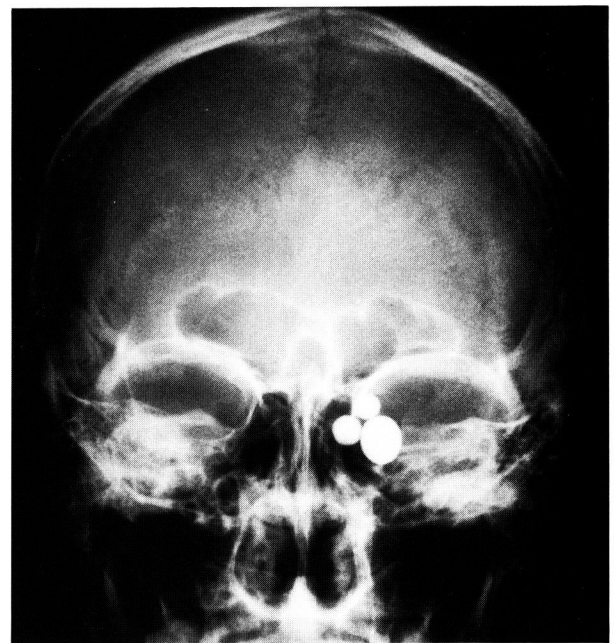


Fig. 6 Plain skull films (frontal view) after the second balloon embolization showed three detached balloons filled with contrast medium in the left cavernous sinus.

ヒは全く変化なく、一過性に左動眼神経マヒが出現したが³⁾、約1週間の経過で回復した。残存した後方への AV shunting については、マタスと止血剤の投与を行ったが、1週間後の follow up angio. で変化なく残存したままだった。血管性雑音の消失と、全体の血栓化を促進させるための完全閉塞を得るため、3回目の塞栓術を予定した。

C. 1990.12.5 塞栓術第3回目

第2回目の塞栓術から1週間後に follow up angio. に引き続き、経静脈的に approach した⁴⁾。右大腿静脈から左内頸静脈に guiding catheter を挿入し、Tracker-18 catheter (Target therapeutic 社製) にて、inferior petrosal sinus から cavernous sinus に入り、残存した後方への AV shunting の出口に、Hiral coil (Cook 社製)

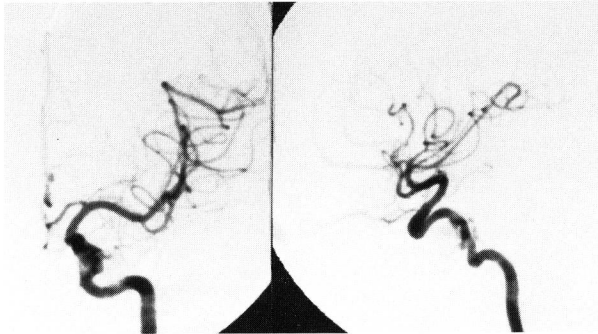


Fig. 7 A : frontal view, B : lateral view ; Left internal carotid angiogram after the coil embolization demonstrated complete obliteration of the CCF.

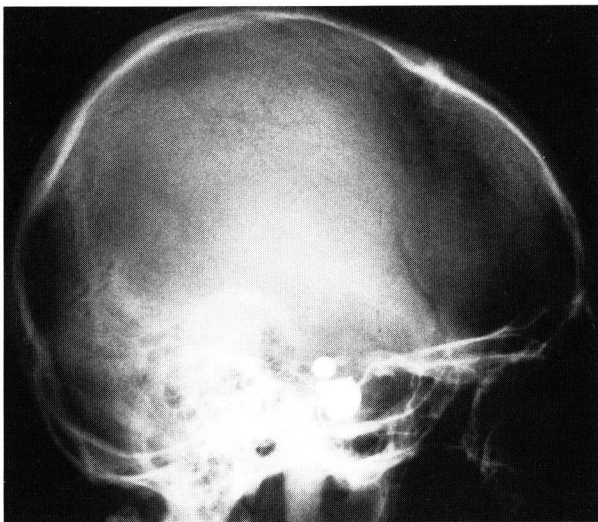


Fig. 8 Plain skull films (lateral) after the coil embolization showed three platinum coils with three detached balloons in the cavernous sinus.

を3本留置し、完全に CCF の閉塞したのを確認して、終了した (Fig. 7, 8)。術後、血管性雑音は完全に消失し、1990.12.14に退院した。

5. 術後経過

退院後、外来にて止血剤の経口投与を行いながら、経過観察。術後、約1か月後に、再び血管性雑音が出現した。術後3か月後の follow up angio. で、inferior petrosal sinus への AV shunting の再発を認めた (Fig. 9)。Superior ophthalmic vein は造影されず、眼症状については変化なかった。また、頭蓋単純写上、留置した balloon は、deflate していた (Fig. 10)。

眼症状に変化のないこと、患者本人にとって雑音があ

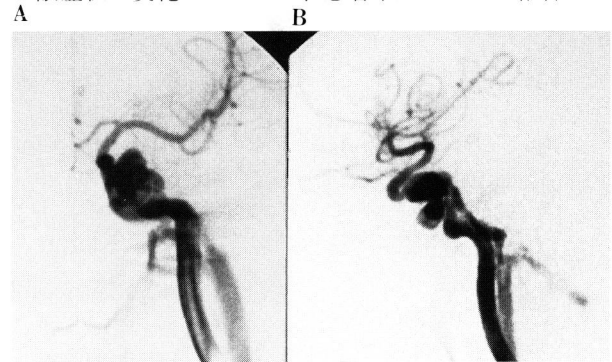


Fig. 9 A : frontal view, B : lateral view ; Left internal carotid angiogram 3 months after the embolization demonstrated recurrence of the CCF draining into inferior petrosal sinus and superior ophthalmic vein was completely obliterated.

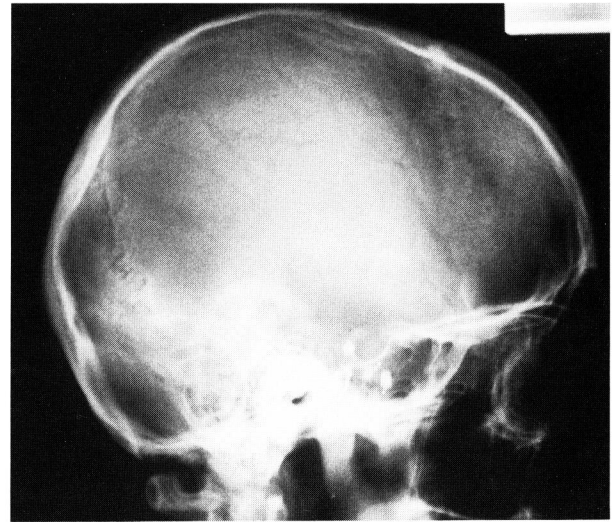


Fig. 10 Plain skull films (lateral view) 3 months after the embolization showed three deflated balloons and three coils in the left cavernous sinus.

まり問題ないとのことで、ITC 社製 Hieshima balloon のような valve 機能のしっかりした balloon での再度の塞栓術を考慮し、経過観察とした。

1991.8頃より、血管性雑音が消失したとの訴えがあり、術後10か月後の1991.9に follow up angio. を施行したところ、AV shunting は完全に消失しており、CCF orifice の部分は、pseudo aneurysm 様の venous pouch が認められた (Fig.11)。その後約6か月の経過で、再発の症状は出現していない。

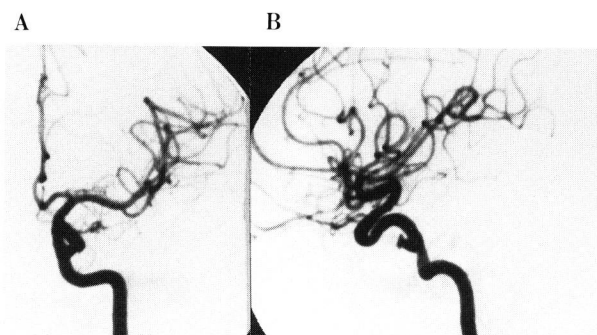


Fig.11 A : frontal view, B : lateral view ; Left internal carotid angiogram demonstrated venous pouch at the orifice of the CCF and the CCF was completely obliterated.

3. 考 察

Barrow は脳血管造影所見に基づいて spontaneous CCF を4つの type に分類している。この中で、type A は direct fistula を有する type で2/14例で認められ、脳血管造影上は、外傷性 CCF と同様の所見を呈するとしている¹⁾。また Mobius らは21例の spontaneous CCF で4例に direct fistula を認め、detachable balloon にて治療している⁶⁾。Spontaneous CCF で、direct な fistula を有する type A の病因、原因疾患については、種々の推察がなされているが、海綿静脈洞部の動脈瘤の破裂によるものや、Ehlers-Danlos syndrome に併発した CCF の症例が報告されている⁵⁾。

本症例の CCF については、外傷を契機として発症しているが、その受傷機転、受傷部位が外傷性 CCF の特徴と異なること、また、受傷前からの左外転神経マヒ、左聴力低下が存在していたことから、外傷性ではなく、特発性 direct CCF type A と診断した。眼球突出症状出現の機序に関しては不明であるが、何らかの理由で、superior ophthalmic vein への shunting が開通したか、

増強したものと思われる。

Spontaneous direct CCF, type A の治療は、外傷性 CCF と同様、detachable balloon による治療が第1選択となる¹⁾⁶⁾。本症例の場合も detachable balloon による治療が第1選択で行われ、後に AV shunting の再発を認めたが、眼症状を改善させることが可能であった。

CCF の治療に際しては、その次善の策である内頸動脈の閉塞による AV shunting の閉鎖も考慮し、術前に tolerance を評価しておくことが肝要である。内頸動脈の manual compression による神経症状出現の有無、EEG,SEP による monitoring など種々の方法が報告されている。我々は、より確実に、実際の閉塞に近い形での閉塞を得るために、double lumen balloon catheter を使用して閉塞を行い、上記の monitoring system に加え、^{99m}Tc-HMPAO SPECT による閉塞時の三次元的脳血流測定を行う方法で行ってきた⁷⁾。^{99m}Tc-HMPAO はその薬理学的性質から、閉塞時の注入にてその脳血流の状態が記憶され、測定時には血管を閉塞する必要がなく、balloon occlusion test の SPECT 診断に適した radio-isotope で、症例によっては、神経症状の出現しない場合においても脳血流の低下を来す状況が把握され、EC-IC bypass の必要性や、潜在的な intolerance の診断に大変有用である⁷⁾。

瘻孔の形状は治療上重要な要素である⁹⁾。すなわち、瘻孔の大きな場合は、balloon が突出して内頸動脈の狭窄を来すことがあり、瘻孔の小さな場合は balloon の挿入自体が困難な場合がある。また亀裂を生じた様な形の瘻孔は、balloon による治療での完全閉塞が困難な場合がある。本症例の場合は瘻孔が大きく、完全閉塞が得られる volume では、balloon が突出して内頸動脈の狭窄を来し、これを避ける状況で balloon を detach したため、superior ophthalmic vein への血流は閉塞することができたが、不完全な閉塞となり、後に経静脈的に coil embolization を追加し、完全閉塞を得ることができた⁴⁾。CCF に対する coil embolization は、cavernous sinus dural arteriovenous shunting,indirect spontaneous CCF で経静脈的 approach により行われ、良好な成績を得ているが、本症例の様な適用の仕方もあると思われる。

本症例は術後、再発、自然治癒と興味深い経過をたどったが、眼症状の再発を認めなかったのは幸運であった。再発に関して考察すると、瘻孔が大きく、balloon による閉鎖が完全でなかったことが原因と考えられる³⁾。ま

た、cavernous sinus が拡張しており、閉鎖に数個の balloon を要したことも一因と考えられる³⁾⁹⁾。造影剤で満たした balloon の natural course での deflation の過程で、十分な血栓化が行われなかったと思われるが、その時間的な要素に関しては、使用した balloon の self sealing valve の機能にも少なからず問題があったと考えられた。約8か月の経過で、自然治癒したが、閉塞への引き金となった事項については、明らかでないが、再発した CCF の血管造影上の特徴として inferior petrosal sinus への流入する route の一部が狭窄しており、coil を留置した route でもあることから、この部分での緩やかな狭窄の進行、血流停滞、血栓形成が、自然治癒の経過と関係したと考えられた。

文 献

- 1) Barrow DL, Spector RH, Braun IF, Landman JA, Tindall SC, Tidall GT: Classification and treatment of spontaneous carotid cavernous sinus fistulas. J Neurosurg 62 : 248-256, 1985
- 2) Debrun G, Lacour P, Caron JP, Hurth M, Comoy J, Keravel Y: Detachable balloon and calibrated leak balloon techniques in the treatment of cerebral vascular lesions. J Neurosurg 49 : 635-649, 1978
- 3) Debrun G, Lacour P, Vinuela F, Fox A, Drake C, Caron JP: Treatment of 54 traumatic carotid cavernous fistula. J Neurosurg 55 : 678-692, 1981
- 4) Halbach VV, Higashida RT, Hieshima GB, Hardin CW, Yang PJ: Transvenous embolization of direct carotid cavernous fistula. AJNR 9 : 741-747, 1988
- 5) Lach B, Nair SG, Russell NA, Benoit GB: Spontaneous carotid-cavernous fistula and multiple arterial dissections in Type IV Ehlers-Danlos syndrome. J Neurosurg 66 : 462-467, 1987
- 6) Mobius E, Berg-Dammer E, Kuhne D, de-Silva RD: Klinik und Therapie spontaner Carotis-Sinus cavernous-Fisteln. Fortschr-Neurol-Psychiatr 57:518-526, 1989
- 7) 中川原讓二, 武田利兵衛, 井出渉, 瓢子敏夫, 宇佐美卓, 高橋州平, 中村順一, 末松克美: ^{99m}Tc-HMPAO SPECT による Balloon Occlusion Test 施行時の局所脳循環動態の評価について. 第4回血管内手術法研究会講演集 195-202, 1987
- 8) 根来真, 景山直樹, 石口恒男, 新谷彬, 柴田孝行, 井口郁三, 瀬口喬士, 佐久間貞行: 離脱式バルーンカテーテルによる外傷性内頸動脈海綿静脈洞瘻の治療. Neurol Med Chir (Tokyo) 24 : 689 - 695, 1984
- 9) 根来真, 石口恒男, 寺島圭一, 景山直樹, 王 天明, 佐久間貞行: 離脱式バルーンカテーテルによる外傷性