

症例報告

2カ所の瘻孔を有する外傷性頸動脈海綿静脈洞瘻の1例

榎本 由貴子 服部 達明* 吉村 紳一 郭 泰彦**

Traumatic Carotid-cavernous Fistula with Unilateral Double Fistula: A Case Report

by

Yukiko Enomoto, M.D., Tatsuaki Hattori, M.D.*, Shin-ichi Yoshimura, M.D., and
Yasuhiko Kaku, M.D.**

from

Department of Neurosurgery, Gifu University School of Medicine,

*Department of Neurosurgery, Gifu Prefectural Gifu Hospital, and

**Department of Neurosurgery, Asahi University Murakami Memorial Hospital

A rare case of traumatic carotid-cavernous fistula (CCF) with unilateral double fistula in a 67-year-old male is presented. An angiogram demonstrated double arterio-venous fistula in the dorsomedial wall of C4 and the ventrolateral wall of C5 of the left internal carotid artery. Both fistulae were successfully obliterated with detachable balloon and platinum coils. Direct laceration of the different segment of the internal carotid artery was a possible cause of the double arterio-venous fistula. The mechanisms for formation of double arterio-venous fistula were discussed.

(Received April 27, 2004; accepted Jun 1, 2004)

Key words: traumatic carotid-cavernous fistula (TCCF), unilateral double fistula, embolization
Jpn J Neurosurg (Tokyo) 13: 718-722, 2004

はじめに

頭部外傷後の外傷性頸動脈海綿静脈洞瘻 (traumatic carotid-cavernous fistula; TCCF) は、多くが Barrow type A に属する direct CCF である^{2)~4)6)}。これらのほとんどが single fistula であるが、稀に複数の瘻孔を有することが報告されている。そのうち両側内頸動脈に瘻孔が存在する例は全体の約 1~2% に認められるが¹⁾⁴⁾、一側内頸動脈に 2 カ所の瘻孔が存在するのはきわめて稀であり、現在までに 4 例が報告されているのみである。

今回われわれは、一側内頸動脈に 2 カ所の瘻孔を有する TCCF を経験した。本病態につき 4 例の文献的考察を含め報告する。

症例呈示

患者: 67 歳, 男性

現病歴: 2003 年 2 月 27 日, 自動二輪車を運転中に乗用車と衝突し右側頭部と顔面を強打した。

入院時所見: 右側頭部および右顔面の著明な腫脹と、両側の鼻・耳出血を認めた。Glasgow Coma Scale 10 (E3 V1 M6) であり、明らかな巣症状は認めなかった。

画像所見: CT では右側頭葉に脳挫傷を認めた。右シルビウス裂を中心とした外傷性クモ膜下出血と air の混入を認めたが、画像上頭蓋底骨折は認めなかった (Fig. 1)。

入院後経過: 大量の鼻出血により出血性ショックとなり、輸血とカテコラミン投与を必要とした。約 2 週間後には意識レベルが JCS 2 まで改善した。右顔面の腫脹が

岐阜大学医学部脳神経外科 / 〒501-1194 岐阜市柳戸 1-1 [連絡先: 榎本由貴子]

Address reprint requests to: Yukiko Enomoto, M.D., Department of Neurosurgery, Gifu University School of Medicine, 1-1 Yanagito, Gifu-shi, Gifu 501-1194, Japan

*岐阜県立岐阜病院脳神経外科

**朝日大学村上記念病院脳神経外科

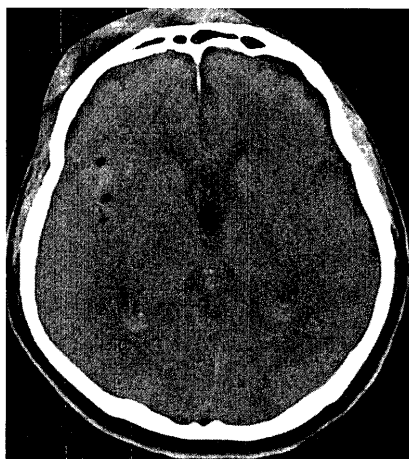


Fig. 1 A CT scan on admission showed thin subarachnoid hemorrhage and a free air in the right sylvian fissure.

軽減するとともに、右動眼神経麻痺、右顔面神経麻痺が明らかとなった。受傷1カ月後より右眼の結膜充血と軽度の眼球突出、右眼窩部での血管雑音を聴取するようになった。MRIにて右上眼静脈(superior ophthalmic vein; SOV)と海綿静脈洞の拡張を認めたため(**Fig. 2**)、TCCFを疑い脳血管撮影を施行した。

脳血管撮影所見: 右頸動脈撮影にて direct CCF を認め、頭蓋内末梢血管の描出は不良であった。左頸動脈撮影では前交通動脈を介する右大脳半球への側副血行が認められた。シャント血流は right SOV に向かう anterior drainage, right pterygoid plexus と coronary sinus を介して両側の下錐体静脈洞(inferior petrosal sinus; IPS) へ向かう posterior drainage の両方の経路から流出していた(**Fig. 3A**)。

塞栓術所見: 右大腿動脈経由で経動脈的塞栓術を行った。まず non-detachable balloon (Naviballoon, Kaneka) で瘻孔の位置を確認したところ、海綿静脈洞部内頸動脈の背側、腹側の両方向から balloon が海綿静脈洞内に移動するため、2カ所の瘻孔が存在すると考えられた。はじめに C4 背側の瘻孔に detachable balloon (Gold valve balloon, Nycomed) を誘導し、HEMA (2-hydroxyethyl methylacrylate) を内部に充填して離脱した(**Fig. 3B**)。しかし、離脱後に balloon が後方へ移動したことにより不完全閉塞となったため、さらに detachable coil (Detach, COOK. Interlocking detachable coil, Boston Scientific) を追加して完全閉塞を得た。本操作後、後方への drainage が消失したため、C5 腹側に存在するもう一カ所の瘻孔が明瞭となった(**Fig. 3C**)。detachable balloon による閉塞を試みたが、内頸動脈からの分枝角度の問題で balloon の誘導が

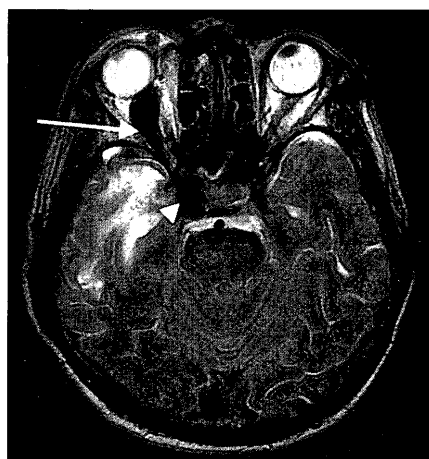


Fig. 2 T2-weighted magnetic resonance image (MRI) showed a markedly dilated right superior ophthalmic vein (arrow) and left cavernous sinus (arrow head). Right temporal lobe contusion was also demonstrated.

困難であった。そこで眼静脈移行部から瘻孔まで detachable coil にて閉塞し、動静脈シャントの完全閉塞が得られた(**Fig. 3D**)。術後、右動眼神経麻痺を含め TCCF に起因する臨床症状はすみやかに改善したが、右顔面神経不全麻痺は残存し、これは外傷時の直接損傷によるものと考えられた⁶⁾。

考 察

TCCF の多くは Barrow らの分類による内頸動脈と海綿静脈洞の直接交通を有する direct CCF (type A) であり、瘻孔の位置は C3 (infraclinoid portion) から C5 (petrous portion)、ほとんどが C4-5 (petrous-cavernous portion 移行部) に位置する。この部分の内頸動脈は petrolingual ligament により頭蓋底に固定されており、解剖学的に頭部外傷時の剪断応力にて損傷されやすいとされている⁶⁾。

TCCF の発生機序としては、①海綿静脈洞部内頸動脈壁の laceration によるものと、②inferolateral trunk, meningohypophyseal trunk などの海綿静脈洞部内頸動脈の分枝の引き抜けによるものの2つの機序が考えられている⁵⁾⁶⁾⁸⁾。

Lasjaunias ら⁶⁾は、これらの発生機序を以下に挙げるような血管撮影の所見から鑑別が可能と述べている。すなわち、海綿静脈洞部分枝は外頸動脈系との吻合が存在するため、これらが引き抜けた場合、外頸動脈から海綿静脈洞が造影される。一方、内頸動脈壁の laceration の場合は、外頸動脈からはまったく瘻孔が造影されないか、造影されたとしても内頸動脈を経て瘻孔が造影される。

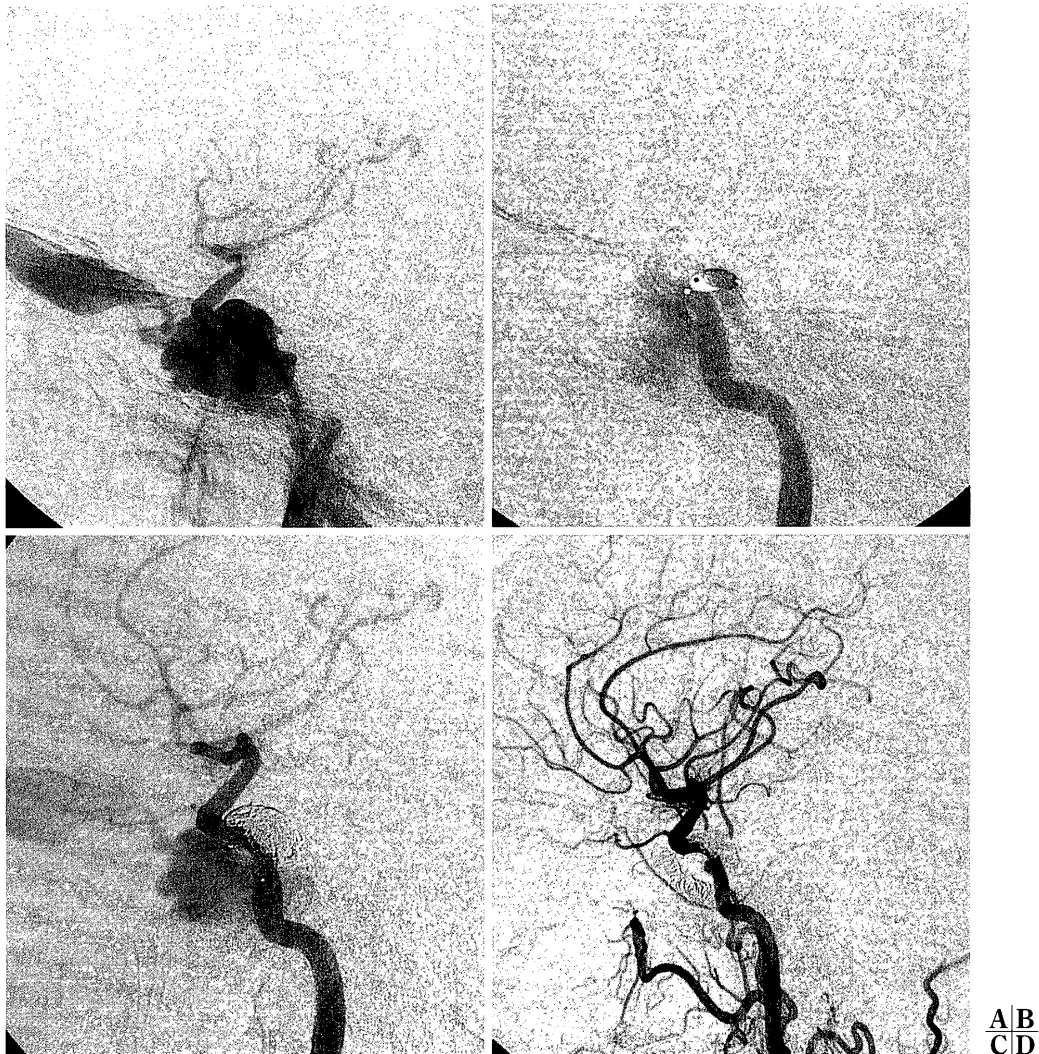


Fig. 3 A : A right internal carotid angiogram 40 days after head injury demonstrated a direct carotid-cavernous fistula (Barrow type A) draining into right superior ophthalmic vein, pterygoid plexus, and bilateral inferior petrosal sinus.
B : A detachable balloon was introduced and detached into a fistula through the dorsomedial wall laceration of C4.
C : Following complete obliteration of the dorsomedial fistula with balloon and coils, posterior drainage was disappeared and another fistula became clearly demonstrated. A non-detachable balloon was navigated to the cavernous sinus through the ventrolateral wall laceration of C5.
D : Arterio-venous shunts were completely obliterated by detachable balloon and detachable coils.

TCCF のほとんどが single fistula であるが、両側内頸動脈に瘻孔がみられる症例が全体の約 1~2% にみられる¹⁾⁴⁾。一側内頸動脈に 2 ヲ所の瘻孔を有する例はきわめて稀で、われわれの渉猟し得た限りでは現在までに 4 例が報告されているにすぎない (Table 1)。Higashida ら⁴⁾は、234 例の TCCF 中で 206 例の direct CCF を認め、そのうち 5 例で両側内頸動脈に瘻孔を、1 例で一側内頸動脈に 2 ヲ所の瘻孔を認めたと報告している。以上の症例

のうち、詳細な記述のある 3 例について瘻孔の発生機序についての検討を行った。

Wilms, Kumar ら⁵⁾⁸⁾は両者とも外頸動脈撮影で海綿静脈洞は造影されなかったが、2 ヲ所の瘻孔には大きさに差があり、それぞれが異なる機序により発生したと推定している。すなわち、大きな瘻孔は内頸動脈壁の laceration で、小さな瘻孔はその解剖学的位置から海綿静脈洞部分枝の引き抜けにより発生したと推察している。一方、

Table 1 Unilateral double traumatic carotid-cavernous fistula

Author (year)	Age/Sex	Location	Orifice	Cause	Draining
Wilms (1990) ⁸⁾	43/M	C4 dorsal	Large	Laceration	IPS
		C4 ventral	Small	Ruptured (ILT)	SOV
Kumar (1992) ⁵⁾	18/M	C5 ventral	Large	Laceration	IPS
		C4 dorsal	Small	Ruptured (MHT)	SOV
Pierot (1992) ⁷⁾	21/M	C4 dorsal	Large	Laceration	IPS
		C4 ventral	Large	Laceration	SOV
Higashida (1989) ⁴⁾	—	—	—	—	—
Present case	67/M	C4 dorsal	Large	Laceration	IPS
		C5 ventral	Large	Laceration	SOV

M : male, IPS : inferior petrosal sinus, SOV : superior ophthalmic vein, ILT : inferolateral trunk, MHT : meningohipophyseal trunk

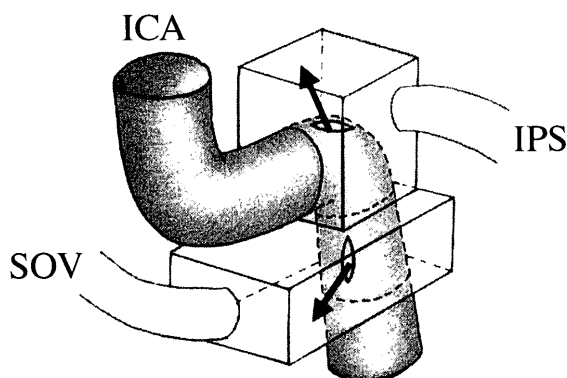


Fig. 4 Schematic drawing of the double arterio-venous fistula (arrows) and its draining routes in the present case

ICA : internal carotid artery, SOV : superior ophthalmic vein, IPS : inferior petrosal sinus

Pierot ら⁷⁾の報告例においては、2カ所の瘻孔の大きさに差は認められず、主に前方に drainage する瘻孔は外頸動脈から眼動脈、内頸動脈を介し造影されており、眼動脈起始部直下の内頸動脈の laceration によるものと推察している。

本症例では、背側、腹側の瘻孔は異なる segment に存在しており、海綿静脈洞内の異なる compartment にシャントしていることから、それぞれが独立した瘻孔であると考えられた (Fig. 4)。また、外頸動脈撮影では瘻孔は造影されず、2カ所とも大きな瘻孔であったことより、背側、腹側とも内頸動脈壁の laceration により形成されたと考えられた。

現在、TCCF の治療は detachable balloon を用いた経動脈的塞栓術が最も適切とされている³⁾⁴⁾⁶⁾。high flow の direct fistula では、detachable balloon を血流に乗せて誘導することが可能であり、正しく瘻孔部位に留置できれば1つの balloon の留置による治癒も可能である。一方、

detachable coil のみで海綿静脈洞内を packing する場合には、大量の coil を必要とするため経済的・時間的に負担が大きくなることがある。しかし、本症例のように detachable balloon での閉塞が不完全に終わった場合や、balloon の誘導が困難な場合には有用と思われた。

結 語

- 1) 一側内頸動脈2カ所の瘻孔を有する外傷性頸動脈海綿静脈洞瘻 (TCCF) の1例を経験した。
- 2) 本症例の発生機序は、海綿静脈洞部内頸動脈の異なる2カ所の segment の laceration によるものと思われた。
- 3) detachable balloon と detachable coil を併用して経動脈的に2カ所の瘻孔を完全閉塞した。

文 献

- 1) Alkhani A, Willinsky R, TerBrugge K: Spontaneous resolution of bilateral traumatic carotid cavernous fistulas and development of trans-sellar intercarotid vascular communication: Case report. *Surg Neurol* 52: 627-629, 1999.
- 2) Barrow DL, Spector RH, Braun IF, Landman JA, Tindall SC, Tindall GT: Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. *J Neurosurg* 62: 248-256, 1985.
- 3) Debrun GM, Viñuela F, Fox AJ, Davis KR, Ahn HS: Indications for treatment and classification of 132 carotid-cavernous fistulas. *Neurosurgery* 22: 285-289, 1988.
- 4) Higashida RT, Halbach VV, Tsai FY, Norman D, Pribram HF, Mehringer CM, Hieshima GB: Interventional neurovascular treatment of traumatic carotid and vertebral artery lesions: Results in 234 cases. *AJR Am J Roentgenol* 153: 577-582, 1989.
- 5) Kumar S, Phadke RV, Mazumdar B, Roy S, Gujral RB: Double traumatic carotidocavernous fistula and its treatment by detachable balloons. *Neuroradiol* 34: 532-533, 1992.
- 6) Lasjaunias P, Berenstein A: Arteriovenous fistulas (AVFs). in Lasjaunias P, Berenstein A, TerBrugge K (eds): *Surgical*

Neuroangiography 2: Endovascular Treatment of Craniofacial Lesions. Berlin, Springer-Verlag, 1987, pp.175-211.

- 7) Pierot L, Moret J, Boulin A, Castaing L: Endovascular treatment of post-traumatic complex carotid-cavernous fistulas, using the arterial approach. *J Neuroradiol* 19:

79-87, 1992.

- 8) Wilms G: Unilateral double carotid cavernous fistula treated with detachable balloons. *AJNR Am J Neuroradiol* 11: 517, 1990.

要 旨

2カ所の瘻孔を有する外傷性頸動脈海綿静脈洞瘻の1例

榎本由貴子 服部 達明 吉村 紳一 郭 泰彦

外傷性頸動脈海綿静脈洞瘻 (traumatic carotid-cavernous fistula; TCCF) では、通常瘻孔は一側内頸動脈に1カ所のみ存在するが、稀に両側内頸動脈に瘻孔が存在したり、同側内頸動脈に複数の瘻孔が存在することが報告されている。

今回われわれは、一側内頸動脈に2カ所の瘻孔を有する TCCF の症例を経験した。本病態の発生機序は海綿静脈洞部内頸動脈の異なる2カ所の segment の laceration によるものと思われた。detachable balloon と detachable coil を併用して経動脈的塞栓術を行い動静脈シャントは完全消失し、症状はすみやかに改善した。

脳外誌 13: 718-722, 2004