

【論文掲載形式】

症例報告

【題名】

外傷性内頸動脈海綿静脈洞瘻に対する血管内手術を用いた治療経験

The endovascular treatment of traumatic cavernous sinus arteriovenous fistulas: A single-center experience.

【著者名】

#清水信行、##鈴木謙介、##藤井淑子、##井上佑樹、##杉浦嘉樹、##河村洋介、##鈴木亮太郎、##中江竜太、##永石雅也、##田中喜展、##兵頭明夫

Nobuyuki Shimizu, Kensuke Suzuki, Yoshiko Fuji, Yuki Inoue, Yoshiaki Sugiura, Yoshuke Kawamura, Ryotaro Suzuki, Issei Takano, Masaya Nagaishi, Yoshihiro Tanaka, and Akio Hyodo

【所属機関】

横浜市立大学医学部附属病院 脳神経外科

The department of neurosurgery, Yokohama City University, School of Medicine.

獨協医科大学越谷病院 脳神経外科

The department of neurosurgery, Koshigaya Hospital, Dokkyo Medical Collage

【連絡先】

〒236-0004

横浜市金沢区福浦 3-9

【e-mail】

nshimizu156@ybb.ne.jp

【key word】

Traumatic carotid cavernous fistula, Parent artery occlusion, TVE

【宣言】

本論文を、日本脳神経血管内治療学会機関誌「**Journal of Neuroendovascular Therapy**(脳神経血管内治療)」に投稿するにあたり、筆頭著者、共著者によって、国内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないことをお誓約いたします。

1 (要旨)

2 目的】頭部外傷後に発生した外傷性内頸動脈海綿静脈洞瘻 (traumatic carotid
3 cavernous fistula : TCCF)に対する自験例を元にその治療法の選択について検討
4 する。方法】2012年4月から2015年7月までに治療したTCCF6例を対象に、
5 その臨床的特徴、治療方法、転帰を後方視的に検討した。結果】TCCF6例の内
6 訳は、平均年齢 45.5 ± 16.8 歳、男女比 5:1 であった。頭部外傷の内訳は、acute
7 subdural hematoma (ASDH) 1例、acute epidural hematoma (AEDH) 1例、脳
8 挫傷2例、頭蓋骨骨折3例であった。受傷後、平均 2.2 ± 1.8 ヶ月 (2日~5ヶ
9 月)で眼球結膜充血、眼球突出、眼球運動障害を呈したが、仮性瘤が破裂した1
10 例は、動脈性鼻出血を認めた。脳血管撮影で瘻孔が内頸動脈海綿静脈洞部にあ
11 ることを確認し、また3D DSAによる計測では瘻孔の最大径は平均 $9.6 \pm$
12 3.2mm ($2.4 \sim 19.9\text{mm}$)であった。全例、手術手技を完遂したが、うち瘻孔が
13 大きく tolerance があるものは parent artery occlusion (PAO) 3例、tolerance
14 がない2例は経静脈的塞栓術(trans venous embolization : TVE)を選択した。瘻
15 孔が小さく単純なものは covered stent を用いたステント留置による血管形成術
16 (percutaneous transluminal angioplasty : PTA)を施行した。いずれもシャントは
17 消失し、1ヶ月以内に神経症状は消失した。平均観察期間は、 21.0 ± 13.5 ヶ月
18 で、再発はなく経過良好であった。結論】TCCF に対する血管内手術は、その
19 症例に応じて適切な方法を選択することで、良好な治療結果を得ることができ
20 た。

21
22 (緒言)

23 外傷性直接型内頸動脈海綿静脈洞瘻(traumatic carotid cavernous fistula :
24 TCCF)は、外傷により内頸動脈と海綿静脈洞の間に瘻孔が形成される病態で、
25 外傷性脳血管障害の約4%を占める¹⁾。一方、TCCFに対する脳血管内治療の有
26 効性は高く、瘻孔閉鎖は88%に達するとの報告もあり²⁾、確実な治療を求めら
27 れる。今回、TCCF に対して血管内手術を施行した自験例6例について、その
28 臨床的特徴、治療方法、転帰を検討した。

29
30 (対象と方法)

31 2012年4月から2015年9月までにTCCFに対して治療したのは、6例であ
32 った。これらの連続した治療症例に対して、以下の項目で後方視的に比較検討

1 した。検討項目として、性別、年齢、外傷機転、外傷時から発症までの期間、
2 症状、脳血管撮影所見、特に瘻孔径、治療方法、手技に伴う有害事象、経過観
3 察中の転帰とした。

4

5 (結果)

6 6症例のまとめを Table 1 に示す。対象患者の男女比は 5 : 1 で、治療時の平
7 均年齢は、45.5 ± 16.8 歳 (22 ~ 72 歳)であった。頭部外傷の内訳は、受傷機
8 転が交通外傷 5 例、転落外傷が 1 例であり、acute subdural hematoma (ASDH)
9 1 例、acute epidural hematoma (AEDH) 1 例、脳挫傷 2 例、頭蓋骨骨折 3 例で
10 あった。頭部外傷後、平均 2.0 ± 1.8 ヶ月(2 日~5 ヶ月)で症状出現したが、
11 眼球結膜充血・眼球突出 6 例、拍動性鼻出血 1 例であった。脳血管造影を施行
12 すると、内頸動脈海綿静脈洞部に瘻孔を有し、海綿静脈洞へ流出していた。ま
13 た瘻孔の最大径を、内頸動脈からの 3D rotation DSA で撮影の後にワークステ
14 ーション(Siemens Syngo™)で解析したが、シャント血流が多く瘻孔の構造が不
15 明瞭の場合は、病側内頸動脈を用手的圧迫下に椎骨動脈または対側内頸動脈か
16 らの逆行性血流を撮影し解析したところ、その大きさは平均 9.6 ± 3.3 mm (2.4
17 ~ 19.9 mm)であった。治療方針として、瘻孔径が大きいもののうち、balloon
18 occlusion test (BOT)によって内頸動脈の瘻孔近位部を閉塞した際に虚血耐性が
19 あるものは parent artery occlusion (PAO)、虚血耐性がないものは経静脈的塞
20 栓術(trans venous embolization : TVE)を選択した。全例で全身麻酔下に血管内
21 治療を施行した。PAO は 3 例に施行した。うち 1 例は TVE を計 2 回施行した
22 が、瘻孔血流は減少したものの残存したままであった。術前に施行した BOT を
23 再検討すると、病側内頸動脈を瘻孔近位部で遮断したことによって、前交通動
24 脈を介した対側内頸動脈からの流出血流が増加しており、頭蓋内血流の盗血現
25 象が起きたことによる偽陽性が考えられた。よって最終的に PAO で治療したが
26 虚血症状は出現しなかった。TVE で完治しえたものは 2 例であったが、いずれ
27 も瘻孔径が 10mm 以下であった(症例 4: 7.5mm, 症例 5.: 5.3mm)。さらに瘻孔
28 径が 2.4mm と最も小さくまた虚血耐性に乏しい症例 6 は院内の倫理委員会での
29 審議を経て、covered stent を用いたステント留置による血管形成術
30 (percutaneous transluminal angioplasty : PTA)を施行した。

31 瘻孔径と手術手技を比較すると、PAO 群での瘻孔径は平均 14.1 ± 4.2mm、非
32 PAO 群は 5.1 ± 2.1mm であり、統計学的に有意差を認めた ($p=0.04$)

1 Mann-Whitney *U* test)。結果的に瘻孔径が 10mm 以上の場合、全例に PAO を
2 要した。治療後、全例ともシャントは消失し、術前の神経症状は 2 ヶ月以内に
3 消失・改善した。観察期間 21.0±13.5 ヶ月の間で、再発した症例はなかった。

4
5 (代表症例)

6 症例 3 : 22 歳男性

7 主訴 : 鼻出血、両側眼球結膜充血、左眼球突出

8 現病歴 : 自転車で転倒し、左前頭部を打撲したため搬送。頭部 CT で左前頭骨骨
9 折、左急性硬膜外血腫を認め、同日緊急開頭手術を施行した。ところが術後 1
10 ヶ月に突然の大量の鼻出血を呈して、当院へ救急搬送された。

11 来院時現症 : 血圧 78/50、脈拍 110、顔面蒼白あり。JCS II -10、両側眼球結膜
12 充血、左眼球突出を認めた。一時的に鼻出血は停止していたが、鼻腔内から内
13 視鏡を用いて観察すると、上鼻甲介鼻粘膜内に拍動する血腫を認めた (Fig. 1A)。
14 血管内治療 : 左内頸動脈造影では、左内頸動脈海綿静脈洞部に CCF を認め、血
15 流は全量シャントへ流出しており、遠位頭蓋内動脈は描出されなかった (Fig. 1B,
16 1C)。左内頸動脈に 9Fr Optimo (ASAHI インテック 名古屋) を留置し、頸部内
17 頸動脈を遮断しながら、右椎骨動脈造影を行うと、後交通動脈 (PcomA) からの逆
18 行性血流は、瘻孔を通して静脈側へ流出しており、その瘻孔径を計測すると
19 10.4mm であった (Fig. 1D, 1E)。瘻孔が大きく、かつ BOT で病側内頸動脈の瘻
20 孔近位側を遮断しても脳虚血症状が出なかったため、全身麻酔下、左内頸動脈
21 に対してプラチナコイルを用いた内頸動脈閉鎖術を同日緊急で施行した。まず
22 PcomA を温存するべく、左内頸動脈に留置したガイディングカテーテルから
23 Scepter XC 4x11mm (TERUMO 東京) を PcomA 基部まで誘導を試みたが順行
24 性には病変部の通過が不可能であった。そこで右椎骨動脈に留置した 6Fr
25 FUBUKI より CHIKAI14 200cm (ASAHI インテック 名古屋) を用いて
26 PcomA を経由して病変部を逆行性に通過させて、左内頸動脈近位側まで誘導し
27 た (Fig. 2A, B)。続いて同ワイヤーに沿わすようにして Scepter XC を改めて通
28 過することに成功し (Fig. 2C)、PcomA 基部に留置した。Balloon 拡張により
29 PcomA を温存しながら、瘻孔部を含めて左内頸動脈をプラチナコイルで閉塞を
30 した (Fig. 2D, E, F)。

31 術後経過 : 術直後より眼球結膜充血・眼球突出は消失し、鼻出血の再発も認め
32 なかった (Fig. 2G)。また虚血症状なく、自宅退院となった。術後 2 年間の経過

1 観察でも、再発を認めなかった。

2

3 症例 6 : 48 歳男性

4 主訴 : 左眼球結膜充血、左眼球突出、拍動性耳鳴

5 現病歴 : 飲酒後転倒し、顔面打撲。頭部 CT で左眼窩骨外側骨折を認め、経過観
6 察目的で入院。ところが翌々日から拍動性耳鳴を自覚した。

7 現症 : 左眼球突出、左眼瞼結膜充血を認めた。左耳介後部、左頬部で血管雑音
8 を聴取した。

9 血管内治療 : 左内頸動脈造影では、左内頸動脈海綿静脈洞部に瘻孔を認めた。

10 その瘻孔径を計測すると 2.4mm であった。血流は全量シャントへ流出しており、
11 遠位頭蓋内動脈は描出されなかった(Fig. 3A, 3B)。右椎骨動脈造影では、PcomA
12 を介して逆行性に瘻孔を介して静脈洞側へ流出していた(Fig. 3C, 3D)。左内頸
13 動脈の瘻孔近位側での BOT では 10 分で虚血症状が出現した。前交通動脈を介
14 した対側内頸動脈及び左後交通動脈を介した椎骨・脳底動脈からの流出血流増
15 加に伴う頭蓋内血流の盗血現象が考えられた。脳血流検査でも左前頭葉・側頭
16 葉を中心にわずかに血流低下を認めた。内頸動脈遮断は虚血耐性が乏しく不可
17 能であった。また瘻孔は小さいが、シャント血流は極めて high-flow であった。
18 そこで院内の倫理委員会での審議を経て、患者及び家族の同意を得たため、
19 covered stent を用いたステント留置による血管形成術(PTA)を施行することと
20 なった。全身麻酔下、左内頸動脈にガイディングカテーテルを誘導、Aguru
21 Support 0.014 inch 300cm (Boston Scientific, Marlboro, USA)で内頸動脈の
22 真腔を確保したのちに、GRAFTMASTER RX 4x16mm (Abbott, Chicago, USA)
23 を瘻孔まで誘導し、同部位において 15 気圧で拡張・展開した(Fig. 4A, 4B)。一
24 部、圧着不良であったため、Gateway 3.5x8mm (Stryker, Kalamazoo, USA)を
25 8 気圧で拡張したところ(Fig. 4C)、シャントは消失し、左内頸動脈も順行性血流
26 を得ることができた(Fig. 4D, 4E)。直後から、眼症状は改善し拍動性耳鳴も消
27 失した。

28

29 (考察)

30 TCCF は、外傷性脳損傷の内、0.17~1.01%で発生する珍しい疾患で、特に内
31 頸動脈に近接した頭蓋骨骨折を原因とすることが多い。内頸動脈は破裂孔と前
32 床突起の間で硬膜輪に固定されており、頭部外傷によって stretch されると、内

1 頸動脈は固定された部位に外力が集中し瘻孔が形成される¹⁾。
2 TCCF における症状として、眼瞼下垂(72~98%)、眼球結膜充血(55~100%)、
3 血管雑音(71~80%)、頭痛(25~84%)があり、さらに複視(88%)・霧視・眼痛など
4 の眼症状も呈するが、いずれも症状は急激に進行する³⁾。
5 TCCF に対する治療法として、最も理想的には内頸動脈を温存しながら瘻孔
6 閉鎖することである。1970 年前半にバルーンカテーテルによるシャント閉塞が
7 報告され、1970 年後半から離脱式バルーンを用いた瘻孔閉鎖が第一選択とされ
8 た。その後、離脱式バルーンの製造中止により離脱式コイルを用いた治療が行
9 われているが、治療に難渋するケースが多くなっており、瘻孔が大きいと、コ
10 イル塊が内頸動脈側に突出するリスクや、不完全閉塞の危険性があるが、**tight**
11 **packing** は海綿静脈洞への **mass effect** をもたらす危険がある⁴⁾。
12 現在、瘻孔に対してバルーンを併用してコイル充填を行う瘻孔閉鎖術⁵⁾、
13 **covered stent**⁶⁾や**flow diverting stent**⁷⁾、**Onyx**などの液体塞栓物質を用いた報告
14 ⁴⁾など様々な工夫が行われているが、内頸動脈の瘻孔の部位を正確に把握し、瘻
15 孔径を計測して治療方法やデバイスの選択をすることが必要である⁸⁾。内頸動脈
16 の瘻孔の血管構造や瘻孔径と選択された治療方法との関連を検討した報告はな
17 いが、一般的な脳血管撮影検査では瘻孔の血管構造や瘻孔径の評価が困難であ
18 ることが原因と考えられる。当施設では、**Artis Q System (Siemens ミュンヘン、ドイツ)**によって対象となる内頸動脈からの**3D rotation image**で瘻孔の構
19 造を検討し、さらに瘻孔径を計測したが、特に瘻孔が大きく造影剤が頭蓋内ま
20 で達しない場合、対側内頸動脈造影や椎骨動脈造影での**cross flow**を用いた**3D**
21 **rotation image**が有用であった。瘻孔の正確な描出方法として、すでに**Tsuji**ら
22 は、内頸動脈の近位をバルーン付きガイディングカテーテルで閉塞しながら、
23 意図的に椎骨動脈からの**cross flow**を作り出すことで、より血管解剖の理解及び
24 正確な瘻孔径の計測が可能であると報告している⁹⁾。さらに**cone-beam CT** など
25 の新たな**modality**の活用でさらに周囲の頭蓋底骨折との位置関係も含めて、より
26 正確な瘻孔の位置、大きさを評価することで、よりの確な治療方法を選択する
27 ことが望ましい¹⁰⁾。一方、術前**BOT**において瘻孔近位側の内頸動脈で遮断すると、
28 盗血現象により前交通動脈を介した対側内頸動脈や後交通動脈を介した椎骨・
29 脳底動脈系の頭蓋内血流の低下をもたらすことが考えられ、理想的には瘻孔部
30 での**BOT**が望ましく、症例6のように、偽陽性となる可能性も示唆された。**TCCF**
31 と**BOT**に関する考察を述べた報告は我々の症例では、瘻孔径が小さいものは、
32

1 経静脈的にコイル塞栓もしくはPTAを施行することで内頸動脈を温存しながら
2 治癒しえたが、瘻孔が10mm以上のものは、経静脈的塞栓術では根治に至らず最
3 終的にPAOが必要であった。今回使用したcovered stentを用いた場合、母血管を
4 温存して瘻孔閉鎖が可能となる。その際は正確な画像診断による瘻孔の大きさ
5 や部位などの解剖学的理解が必要である。全例とも術後の経過は良好で、症状
6 も2ヶ月以内に改善した。6例と限られた症例であるが、TCCFの治療方針を検討
7 する上で一助になる結果であると考え。

8 (結語)

9 TCCFに対する脳血管治療を行うにあたり、瘻孔の大きさにより治療方針を検
10 討するべきと思われる。そのためには瘻孔の大きさや部位等の正確な把握が重
11 要であり、それぞれに応じた血管内治療手技を選択する必要がある。

12 利益相反の開示

13 本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

14

15 参考文献

16 1. Aguiar G. B., Jory M., Silva J. M., et Al: Advances in the
17 endovascular treatment of direct carotid-cavernous fistulas. 2016; 62, 78–84.
18

19 2. Higashida R.T., Halbach V.V., Tsai F.Y. et Al: Interventional
20 neurovascular treatment of traumatic carotid and vertebral artery lesions:
21 results in 234 cases. AJR Am J Roentgenol, 1989; 153: 577-582.
22

23 3. Ellis J. A., Goldsten H., Connolly E. S., et Al: Carotid-cavernous
24 fistulas. Neurosurg Focus, 2012; 32 (5): E9.
25

26 4. X. Zhang, W. Guo, R. Shen, et Al: Combined use of Onyx and coils
27 for transarterial balloon-assisted embolization of traumatic
28 carotid-cavernous fistulas: a report of 16 cases with 17 fistulas. J

- 1 NeuroIntervent Surg. 2016; 0: 1-4.
2
- 3 5. Gonzalez L. F., Chalouhi N., Tjoumarkaris S., et al: Treatment of
4 carotid-cavernous fistulas using intraarterial balloon assistance: case series and
5 technical note. *NeuroSurg Focus*, 2012; 32 (5): E14.
- 6 6. K Li, Y. D. Cho, K. M. Kim, et Al: Covered Stents for the
7 Endovascular Treatment of a Direct Carotid Cavernous Fistula: Single
8 Center Experiences with 10 Cases. *J Korean Neurosurg Soc.* 2015; 57 (1):
9 12-18.
- 10 7. Pradeep N., Nottingham R., Kam A., et Al: Treatment of
11 post-traumatic carotid-cavernous fistulas using pipeline embolization device
12 assistance. *J NeuroIntervent Surg*, 2015; 00:1-3.
- 13
- 14 8. Samaniego E. A., Martinez-Galdamez, M. & Abdo, G.: Treatment of
15 direct carotid-cavernous fistulas with a double lumen balloon. *J.*
16 *Neurointervent Surg*, 2016; 8: 531-535.
- 17
- 18 9. Tsuji, K., Nakagawa N., Fukawa N., et Al: A novel technique for identifying
19 the fistulous point in a direct carotid-cavernous fistula. *J. Clin. Neuroscience.*
20 2015; 25, 152–155.
- 21 10. Lee J. Y., Jung C., Ihn Y. K., et Al: Multidetector CT angiography in
22 the diagnosis and classification of carotid-cavernous fistula. *Clinical*
23 *Radiology*, 2016; (71) e64-e71.
- 24
25
26

1 Table

2 The characteristics, treatments and outcome of the patients of the direct
3 carotid-cavernous fistula caused by trauma.

4

5 Fig. 1A Nasal endoscopic view 、 Fig. 1B, 1C Preoperative left internal carotid
6 angiogram (B: A-P view, C: lateral view)、 Fig. 1D, 1E Preoperative right vertebral
7 angiogram (D: A-P view, E: lateral view)

8 The nasal endoscope showed the pulsatile hematoma under the nasal mucosa of the left
9 superior concha(Fig. 1A). The left internal carotid artery angiogram showed the direct
10 carotid cavernous fistula in the cavernous position. (Fig. 1B ; AP view, Fig. 1C ; Lat
11 view) The arrow point is the fistula of the shunt. The right vertebral artery angiogram
12 showed the retrograde flow from the left PcomA to the fistula under the balloon
13 occlusion of the left internal carotid artery. (Fig. 1D ; AP view, Fig.1E ; Lat view) The
14 arrow point is the fistula of the shunt.

15

16 Fig. 2A Intraoperative right vertebral angiogram with the balloon occlusion of left
17 internal carotid artery 、 Fig 2B, 2C Intraoperative X ray 、 Fig. 2D, 2E Postoperative
18 right vertebral angiogram (D: DA image, E: DSA enlarged image, F: DSA image)、 Fig.
19 2G Postoperative nasal endoscopic view

20 The micro balloon was difficult to pass through the origin of PcomA, so the micro
21 guide wire was reversally passing through from PcomA to the left internal carotid artery
22 (Fig 2A, Fig 2B). The micro balloon was easily passing through the shunting point
23 along the micro wire (Fig. 2C). The coil embolization of the left internal carotid artery
24 including the fistula was performed under the balloon protection of the left PcomA (Fig
25 2D). The shunt was disappeared after the coil embolization (Fig 2E, Fig. 2F). The nasal
26 hematoma was also disappeared (Fig 2G).

27

1 Fig. 3A, 3B Preoperative left internal carotid angiogram (A ; A-P view, B ; lateral
2 view)、 Fig. 3C, 3D Preoperative right vertebral angiogram (C ; A-P view, D ; lateral
3 view)

4 The left internal carotid artery angiogram showed the direct carotid cavernous fistula
5 in the cavernous position (Fig. 3A ; AP view, Fig. 3B ; Lat view). The arrow point is the
6 fistula of the shunt. The right vertebral artery angiogram showed the retrograde flow
7 from the left PcomA to the fistula (Fig. 3C ; AP view, Fig. 3D ; Lat view). The arrow
8 point is the fistula of the shunt.

9

10 Fig. 4A Preoperative right vertebral angiogram、 Fig. 4B Intraoperative right vertebral
11 angiogram、 Fig. 4C Intraoperative X ray、 Fig. 4D, 4E Postoperative left internal carotid
12 angiogram (D ; A-P view, E ; lateral view)

13 The stiff micro guide wire (Aguru support) was carefully passing through to the distal
14 part of the left internal carotid artery. The covered stent (GRAFTMASTER RX) was
15 navigated and deployed at the shunting point (Fig. 4A, 4B). After the deployment of the
16 stent, the angioplasty using the micro-balloon (Gateway) was added (Fig. 4C). The
17 shunt was disappeared (Fig. 4D, 4E).

18

19

case	age	sex	trauma	symptom	Onset to Symptom	fistula size	IVR	IVR	IVR	complication	Outcome	F/U
1	30	M	contusion, skull frac.	ptosis, blindness	1	19.9	PAO			NA	GR	24
2	42	M	contusion	exophthalmos, chemosis	1	12.0	TVE	TVE	PAO	NA	GR	8
3	22	M	AEDH	exophthalmos, chemosis, epistaxia	1	10.4	PAO			NA	GR	18
4	72	M	ASDH	exophthalmos, chemosis	5	7.5	TVE			NA	MD	4
5	59	F	orbital bone frac.	exophthalmos, chemosis	4	5.3	TVE			NA	GR	35
6	48	M	skull frac.	exophthalmos, chemosis	0.1	2.4	PTAS			NA	GR	3

Fig. 1

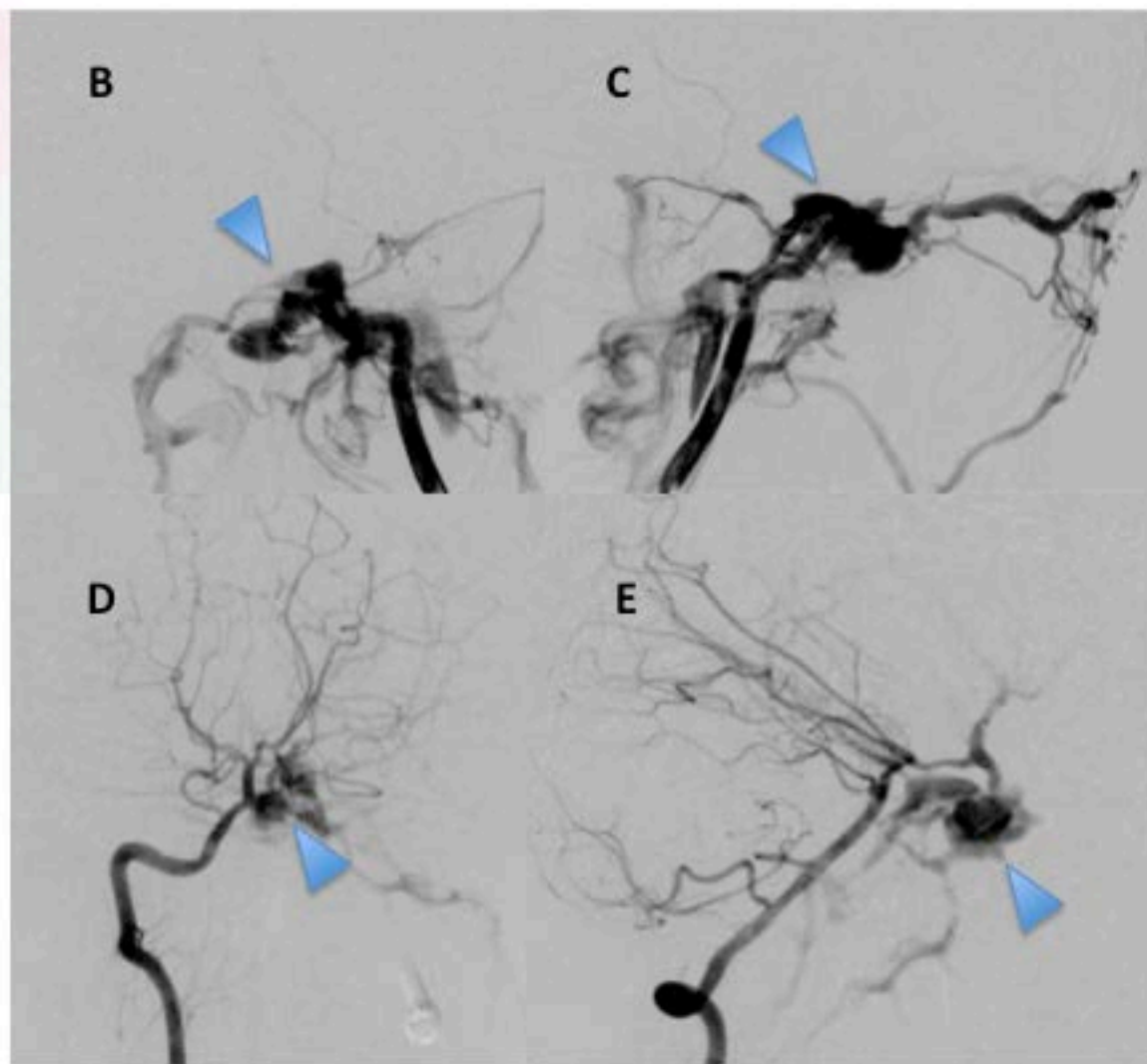


Fig.2

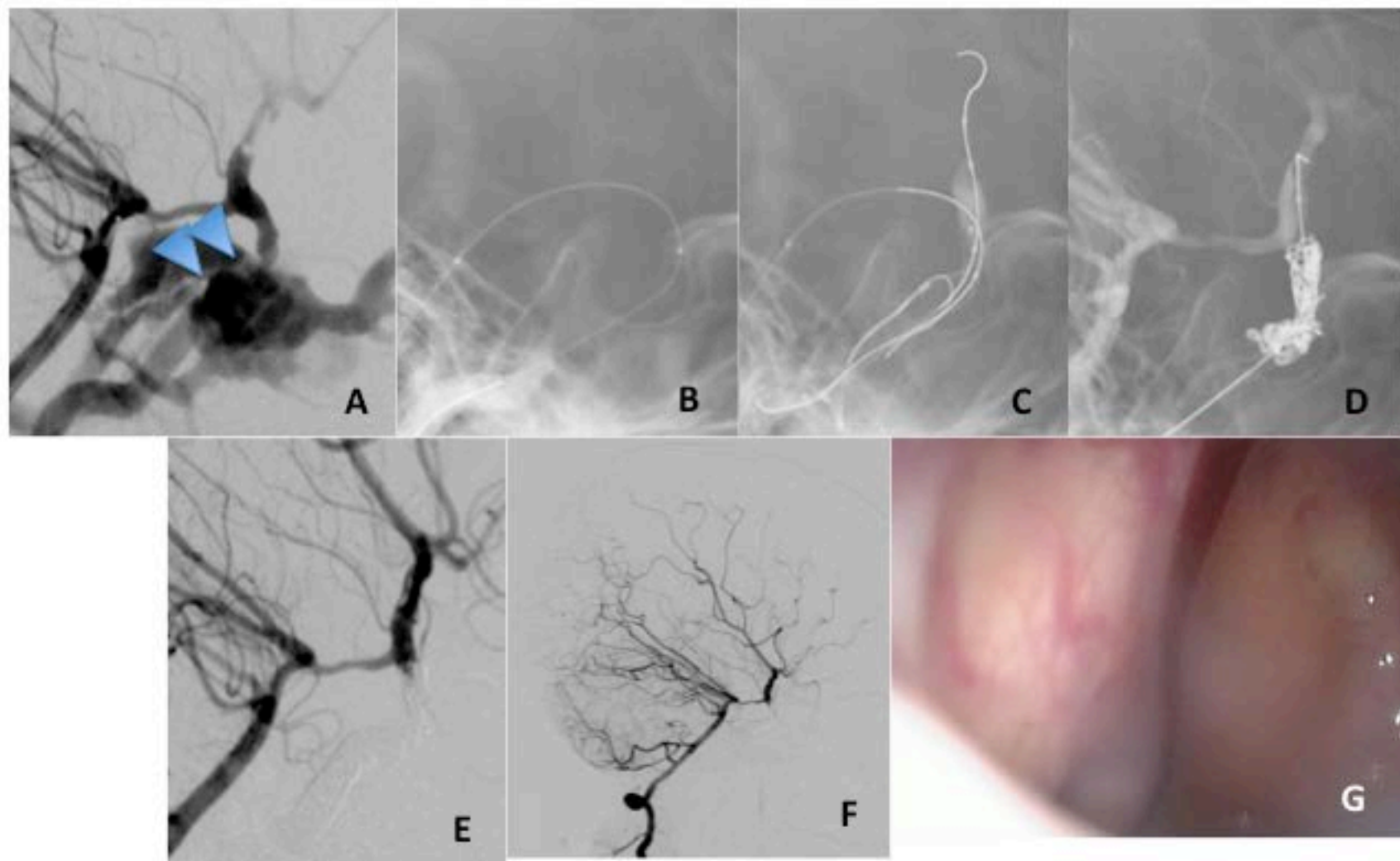


Fig.3

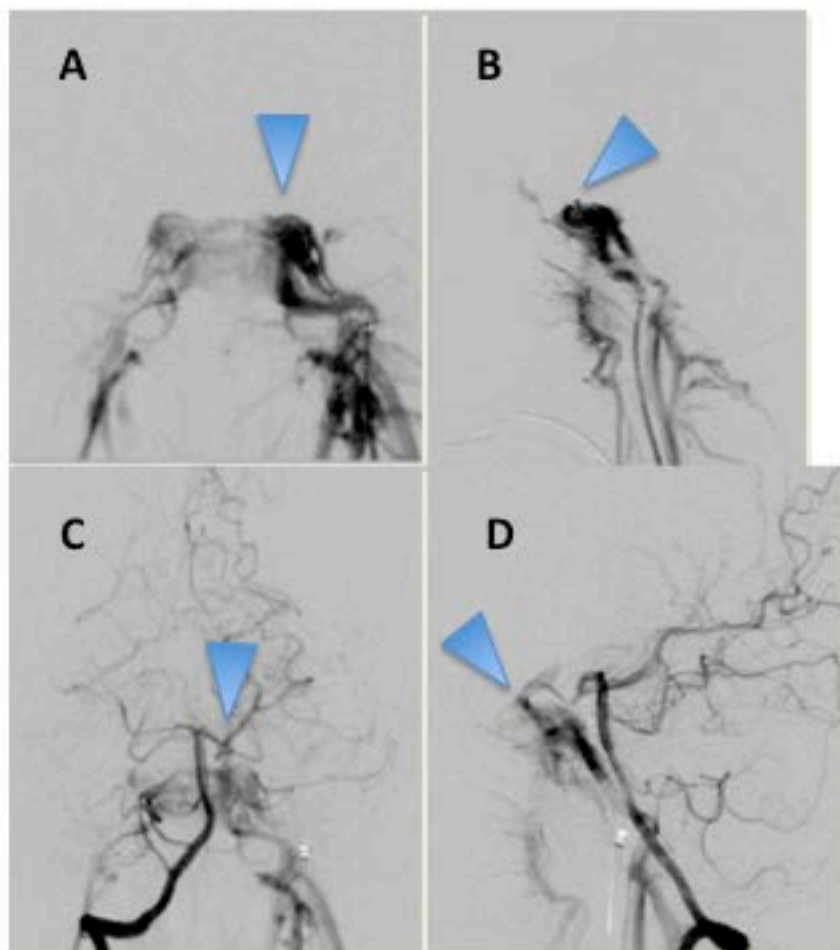


Fig.4

