

症例報告

経動脈および経静脈双方向からダブルカテーテルテクニックを用いて塞栓した直接型内頸動脈海綿静脈洞瘻の一例

濱野 栄佳^{*1}、佐藤 徹^{*1}、堀 貴光^{*1}、高橋 淳^{*1,2}、片岡 大治^{*1}

^{*1} 国立循環器病研究センター 脳神経外科

^{*2} 近畿大学医学部 脳神経外科

key word: direct carotid cavernous fistula, transvenous embolization, transarterial embolization

連絡著者:

佐藤 徹

国立循環器病研究センター

脳神経外科

〒564-8565

大阪府吹田市岸部新町 6-1

[Tel:06-6170-1070](tel:06-6170-1070)、[Fax:06-6070-1884](tel:06-6070-1884)

Email: tetsus@ncvc.go.jp

本論文を、日本脳神経血管内治療学会 機関誌 JNET Journal of Neuroendovascular Therapy 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誓約致します。

要旨

【目的】

直接型内頸動脈海綿静脈洞瘻 (direct carotid-cavernous fistula: CCF) に対して、経動脈および経静脈的塞栓を併用して治療した症例を報告する。

【症例】

57歳女性。3ヶ月前から右眼球結膜浮腫と眼球突出を自覚。脳血管撮影で high-flow shunt を認め、内頸動脈海綿静脈洞部動脈瘤破裂による direct CCF と診断した。内頸動脈と上眼静脈を介して2本のマイクロカテーテルを動脈瘤に誘導し、瘤頸部から連続する shunt segment をコイル塞栓することによりシャントの完全閉塞を得た。

【結論】

双方向から誘導した2本のカテーテルを組み合わせることにより、シャントの完全閉塞を得られた。

【緒言】

直接型内頸動脈海綿静脈洞瘻 (direct carotid-cavernous fistula: direct CCF) は内頸動脈と海綿静脈洞の間に異常なシャントを生じる疾患であり、突然の眼球運動障害、眼球充血、眼球突出などをきたす。direct CCF の多くは外傷性とされるが、Carotid-cavernous aneurysm (CCA) 破裂により発症することもある。¹CCA の多くは無症候性であるが、大型または巨大 CCA では mass effect による脳神経症候を生じることがある。一方 CCA 破裂の頻度は少ないと報告されているが、CCA が破裂した際には direct CCF や稀ながらも膜下出血を生じる。² direct CCF に対する治療は離脱式バルーン、コイルによる瘤内塞栓術、flow diverter、母血管閉塞等が報告されているが、high-flow shunt ではシャント閉塞に難渋することがある。^{2,3} 今回、CCA 破裂による direct CCF に対して内頸動脈と上眼静脈の2方向からマイクロカテーテルを誘導した、ダブルカテーテルテクニックによる瘤内塞栓でシャントの完全閉塞を得られた症例を経験したので報告する。

【症例提示】

症例：57歳、女性

既往歴：頭部外傷の既往はなし

現病歴：約1年前から右拍動性耳鳴を自覚していた。3ヶ月前から右眼球結膜浮腫と眼球突出を認め、近医で頭部MRI/Aを撮影されCCFの疑いで当科へ紹介された。

入院時現症：意識清明、右拍動性耳鳴、右眼球結膜浮腫、眼球突出 右：17mm、左：10mm、眼球運動障害なし、複視なし、眼圧 右：

23mmHg、左：17mmHg

画像所見：頭部 MRI では明らかな頭蓋内出血性病変は認めなかった。Time-of-flight(TOF)-MRA では海綿静脈洞内の高信号と怒張した右 Superior ophthalmic vein(SOV)、および IC 外側に位置する海綿静脈洞部動脈瘤を認めた。(Figure1) 脳血管撮影で CCA と同部位の high-flow shunt を認めた(Figure2A-2E)。シャント血流は SOV から angular vein を介して facial vein、external jugular vein へドレナージされており、angular vein には狭窄病変を認めた(矢印：Figure2B, 2D)。その他に Superficial middle cerebral vein(SMCV)および basal vein of Rosenthal(BVR)への頭蓋内静脈逆流と middle temporal vein(MTV)への静脈流出路を認めた(Figure2C, 2D)。頭蓋内皮質静脈には pseudophlebitic pattern を伴っている所見であった。(Figure2D)

血管内治療：症候性であり、皮質静脈逆流と右眼の眼圧上昇を認めることから、頭蓋内出血および失明リスクがあると判断し、早期の治療介入を行った。全身麻酔下で経動脈および経静脈的アプローチによる瘤内塞栓を行った。右大腿動脈に 7F long sheath、左大腿動脈に 5F long sheath、右大腿静脈に 6F long sheath を挿入した。全身へパリン化し術中は活性化全血凝固時間(ACT)>250 に維持した。右内頸動脈(IC)に 7F Roadmaster(グッドマン, 愛知)、左 IC に 4F OK-1(ガデリウス・メディカル, 東京)を誘導した。右 IC petrous portion に SHOURYU 7mmx7mm(カネカメディクス, 大阪)を誘導しバルーンを拡張させた状態で、左 IC 撮影および 3D-RA を施行した。これにより同定した動脈瘤頸部から連続する

shunt segment に XT-17(Stryker, Kalamazoo, MI, U.S.A.)を誘導した。SHOURYU 7mmx7mm は動脈瘤頸部に留置した。次いで経静脈的塞栓に用いるため 6F Roadmaster を右外頸静脈へ、4F Cerulean G(メディキット, 東京)を右 facial vein へ誘導した(Figure3A, 3B)。facial vein へ 4F カテーテルを誘導した後も対側 SOV から facial vein への流出路が保たれていることを確認して、手技を続行した(Figure3C)。shunt segment の形状から本症例は short segment での shunt occlusion が可能と考えられたが、困難な場合には SMCV の入口部を閉塞した後に TVE での sinus packing への移行を想定していた。この際に症状の原因となっている SOV への逆流を閉塞することを可能とするためにも trans-facial vein approach を選択した。上記処置をとっても shunt が残存する場合は二期的に ICA への stent 留置もしくは ICA sacrifice という選択を行うこととした。既に shunt segment に誘導してある XT-17 を landmark として、facial vein に誘導した 4F Cerulean G から SL10(Stryker, Kalamazoo, MI, U.S.A.)を瘤内へ誘導した(Figure3B)。XT-17(IC から誘導)と SL10(SOV から誘導)それぞれからコイルを挿入し、double catheter technique に SHOURYU を inflate した neck remodeling を併用して 2 本のコイルによる frame を形成した(Penumbra SMART SOFT 4mmx10cm, Penumbra, Alameda, CA, U.S.A., ED complex 4mmx12cm, カネカメディクス, 大阪)。経動脈カテーテルから誘導していた Penumbra SMART SOFT を離脱した。シャント上流側を tight に塞栓するため、経動脈カテーテルから Galaxy G3 XSFT

3.5mmx5cm(Cerenovus, Johnson and Johnson, New Brunswick, NJ, USA)、Hydrocoil3D 2mmx3cm(テルモ, 東京)をバルーン併用下で挿入した。右 IC からの血管撮影でシャント血流が著明に減少していることを確認できたが、確実なシャント閉塞を達成するため経静脈カテーテルから Galaxy G3 MINI 1.5mmx3cm, 1.5mmx2cm(Cerenovus, Johnson and Johnson, New Brunswick, NJ, USA)を挿入した。経動脈および経静脈経路で誘導した2本のカテーテルから計6本のコイルを挿入し、動脈瘤頸部にあたる shunt segment を tight に塞栓した(Figure 3D)。これにより direct CCF の完全閉塞を確認して治療を終了した(Figure 3E, 3F)。

術後経過：術後眼球結膜浮腫は消退した。右眼圧は術前 23mmHg から術後 9mmHg へ、眼球突出は術前 17mm から術後 13mm へ改善し、mRS 0 で自宅退院となった。頭部 MRI/A による経過観察を行い、術後2年で再発を認めていない(Figure 3G)。

【考察】

CCA は頭蓋内動脈瘤の 2-9%を占めており、多くは無症候性で偶発的に診断される。^{2,4} 破裂率は他の頭蓋内動脈瘤と比較して低く、12mm 以下では 0%、大型瘤でも 3.0-6.4%と報告される。⁵ mass effect による眼球運動障害や顔面の感覚障害で症候化することが多いが、瘤破裂による direct CCF や、稀ではあるがくも膜下出血を発症することもある。^{2,3} direct CCF では流出静脈の拡張と眼窩のうっ血による眼球突出、眼球結膜浮腫といった眼症状が主となることが多い。^{2,3} 本症例は3ヶ月前からの眼球結膜浮腫と眼球突出で診断されたが、1年前から耳鳴を自覚していたことから、

罹患期間が長いことが推測される。右眼圧上昇を認めており、脳血管撮影で頭蓋内出血のリスクとされる⁶ pseudophlebitic pattern を認めることから、失明と頭蓋内出血を回避するため早期のシャント閉塞が必要であると考えられた。

direct CCF に対する直達手術は、母血管閉塞術も含め高侵襲であり合併症率が高かった。そのため 1974 年に Serbinenko が離脱式バルーンによる治療を報告して以降、血管内治療が direct CCF 治療の第一選択とされる^{1,7}。しかし、離脱式バルーン自体は技術的問題や再発リスクがある上、本邦を含め複数の国で使用できない¹。したがって direct CCF に対する血管内治療は①aneurysmal occlusion、②cavernous sinus packing、③parent artery occlusion のいずれかであるといえる。CCA に対する瘤内塞栓術は一般的な治療として認識されており^{3,7}、ステント支援下コイル塞栓術の有用性も報告されている⁸。しかしながら、direct CCF は high-flow shunt であることが珍しくなく、最終的に母血管閉塞を要する症例が 15-20%程度存在する^{3,8}。最近では flow diverter を併用した症例報告も散見されるが、閉塞率は高くないのが現状である⁹。

aneurysmal occlusion や sinus packing では coil mass による一過性または永続性の脳神経麻痺を生じることがあり、挿入したコイルの量がそのリスク因子となる^{10,11}。この合併症回避のために、海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻に対して shunt segment もしくは shunted pouch と呼ばれる shunt point のすぐ下流の限局したスペースに少量のコイルを留置し、shunt を閉塞する方法が報告されており、良好な成績を収めている。¹² 本症例では動脈瘤頸部か

ら海綿静脈洞に連絡する部位に shunt segment といえる限局したスペースを同定できたことから、この segment を標的とした塞栓を行うことでシャント閉塞が可能であると判断した。

Baxter らによってもはじめて報告された double catheter technique はコイル塊を安定化させることが可能であり、現在では脳動脈瘤の塞栓術で一般的に用いられている¹³。さらにシャント疾患においては経動脈および経静脈的アプローチを組み合わせた multipronged catheter approach を direct CCF、vertebrovertebral arteriovenous fistula、persistent primitive trigeminal artery-cavernous sinus fistula において当科から報告した¹⁴⁻¹⁶。

この手法は①shunt segment への確実なマイクロカテーテル誘導、②compact かつ tight なコイル塞栓、③予定外のカテーテル逸脱に対するリスクヘッジとして有用であり、high-flow shunt である本症例においても頸動脈と SOV から双方向性にカテーテルを誘導することにより、必要最小限のコイルで shunt segment を塞栓することができた。

cavernous sinus への到達経路は indirect CCF と同様であり、たとえ閉塞していたとしても inferior petrosal sinus (IPS) が最短経路であり第一選択といえる。さらに CCF において SOV は重要な静脈流出路であり、SOV アプローチによる流出路閉鎖により治療中の cavernous sinus や他の危険な静脈流出路への静脈圧を上昇させることによる眼症状悪化や頭蓋内出血のリスクが指摘されており¹⁷、SOV からのアプローチは慎重に決定すべきである。本症例では shunt segment へのマイクロカテーテル到達という点に

において、解剖学的に有利であり SOV アプローチを選択した。治療中は distal access catheter の誘導を angular vein の狭窄部より近位までにとどめ、かつ対側 SOV への流出路への静脈流出が保たれており cavernous sinus や皮質静脈への静脈圧上昇を生じていないことを確認した上で塞栓を行うことにより、SOV アプローチの安全性を担保した¹⁷⁾。

【結語】

CCA 破裂による direct CCF に対して、IC と SOV の 2 方向からマイクロカテーテルを誘導したコイル塞栓術によりシャントの完全閉塞を得た。この bidirectional double catheter technique は安全かつ、最小限のコイルで shunt segment を塞栓することが可能であり、有用であった。

【利益相反開示】

佐藤徹はキャノンメディカルシステムズから研究費の助成を受けている。ただし本論文との直接関係はない。

【文献】

1. Kobayashi N, Miyachi S, Negoro M, et al. Endovascular Treatment Strategy for Direct Carotid-Cavernous Fistulas Resulting from Rupture of Intracavernous Carotid Aneurysms. *Am J Neuroradiol.* 2003;24:1789-1796.
2. Ghorbani M, Hejazian SE, Dastmalchi A, et al. Orbital Compartment Syndrome Secondary to Direct Carotid Cavernous Fistula After Carotid Cavernous Aneurysm Rupture: Case Report and Review of Literature. *World Neurosurg.*

- 2020;133:409-412.
3. Rooij van WJ, Sluzewski M, Beute GN. Ruptured Cavernous Sinus Aneurysms Causing Carotid Cavernous Fistula : Incidence , Clinical Presentation , Treatment , and Outcome. *Am J Neuroradiol.* 2006;27:185-189.
 4. Vercelli G, Sorenson TJ, Aljobeh AZ, et al. Cavernous sinus aneurysms: Risk of growth over time and risk factors. *J Neurosurg.* 2020;132:22-26.
 5. Wiebers DO, Whisnant JP, Huston 3rd J, et al. Unruptured intracranial aneurysms: Natural history, clinical outcome, and risks of surgical and endovascular treatment. *Lancet.* 2003;362:103-110.
 6. Brinjikji W, Cloft HJ, Lanzino G. Clinical presentation and imaging findings of patients with dural arteriovenous fistulas with an angiographic pseudophlebitic pattern. *Am J Neuroradiol.* 2020;41:2285-2291.
 7. Gemmete JJ, Ansari SA, Gandhi D. Endovascular Treatment of Carotid Cavernous Fistulas. *Neuroimaging Clin N Am.* 2009;19:241-255.
 8. Eddleman CS, Surdell D, Miller J, et al. Endovascular management of a ruptured cavernous carotid artery aneurysm associated with a carotid cavernous fistula with an intracranial self-expanding microstent and hydrogel-coated coil embolization: case report and review of the literature. *Surg*

- Neurol.* 2007;68:562-567.
9. Baranoski JF, Ducruet AF, Przbylowski CJ, et al. Flow diverters as a scaffold for treating direct carotid cavernous fistulas. *J Neurointerv Surg.* 2019;11:1136-1141.
 10. Kashiwazaki D, Kuwayama N, Akioka N, et al. Delayed abducens nerve palsy after transvenous coil embolization for cavernous sinus dural arteriovenous fistulae. *Acta Neurochir (Wien).* 2014;156:97-101.
 11. Nishino K, Ito Y, Hasegawa H, et al. Cranial nerve palsy following transvenous embolization for a cavernous sinus dural arteriovenous fistula: Association with the volume and location of detachable coils. *J Neurosurg.* 2008;109:208-214.
 12. Satow T, Murao K, Matsushige T, et al. Superselective shunt occlusion for the treatment of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae. *Neurosurgery.* 2013;73:100-105.
 13. Baxter BW, Rosso D, Lownie SP. Double microcatheter technique for detachable coil treatment of large, wide-necked intracranial aneurysms. *Am J Neuroradiol.* 1998;19:1176-1178.
 14. Ishiguro T, Satow T, Okada A, et al. Spontaneous Persistent Primitive Trigeminal Artery-Cavernous Sinus Fistula Successfully Treated by Multipronged Coil Embolization: Case Report and Literature Review. *World Neurosurg.* 2019;128:122-126.
 15. Ito Y, Satow T, Matsubara H, et al. Selective Shunt Occlusion

- of Direct Carotid-Cavernous Fistula with Vascular Ehlers-Danlos Syndrome by Multidevice Technique: A Case Report and Technical Note. *World Neurosurg.* 2019;122:123-128.
16. Ono I, Satow T, Ito Y, et al. Case of Iatrogenic Vertebral-Vertebral Arteriovenous Fistula Treated by Combination of Double-Catheter and Balloon Anchoring Techniques. *World Neurosurg.* 2019;128:98-101.
17. Satow T. Endovascular Treatment of Cavernous Sinus Dural Arteriovenous Fistulae: Review of the Literature and Current Status. *J Neuroendovascular Ther.* 2020;14:572-582.

【図表の説明】

Figure 1: MRI on admission.

Time-of-flight-MRA on admission shows enlargement of superior ophthalmic vein (SOV) and significant flow signal at right cavernous sinus. The carotid cavernous aneurysm is pointed by an arrow.

Figure2: DSA at diagnosis

A, B: Arterial phase of initial right internal carotid artery (ICA) angiography, anteroposterior (1A) and lateral (1B) views, showed high-flow shunt at cavernous sinus draining to superior ophthalmic vein (black arrow) and superficial middle cerebral vein (white arrow).Also, severe stenosis at the curve of angular vein draining to facial vein was revealed. (white arrowhead)

C: DSA at the working angle to show the carotid-cavernous aneurysm (CCA) clearly. Dotted line traced the contour of the aneurysm. White arrows pointed to the shunt segment.

D: Late arterial phase of right ICA angiogram, showing cortical venous reflux with pseudophlebitic pattern.

E: Early venous phase of right ICA angiography revealed venous drainage to contralateral basal vein of Rosenthal (white arrowheads) and middle temporal vein (black arrows).

Figure3 Intraoperative angiography.

A, B: Working angle of right ICA angiogram during the procedure, viewed from left, cranial projection (LAO 90 degree, Cranial 27 degree), Figure3B showed two microcatheters navigated to the fistula and intracranial balloon catheter (arrow). Solid line: XT17 from ICA. Dotted line: SL10 from SOV.

C: Venous phase at the same working angle. Right ICAG after navigating distal access catheter and microcatheter through SOV, revealed enough venous drainage via contralateral superior ophthalmic vein(SOV) (white arrows) to cavernous sinus instead of the stagnant angular vein (arrowheads).

D: The shunt segment is completely embolized with seven coils.

E: Right IC angiogram, anteroposterior(3E) and lateral(3F) view, showed extirpation of the shunted flow.

G: Follow up MRA two years after the procedure showed no recurrence of the aneurysm and the shunt.

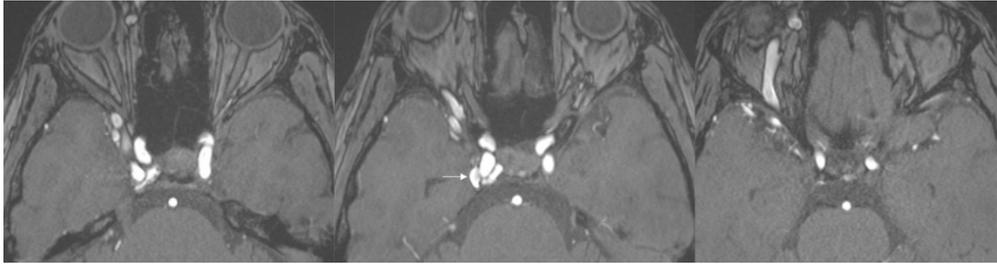


Fig. 1

172x45mm (300 x 300 DPI)

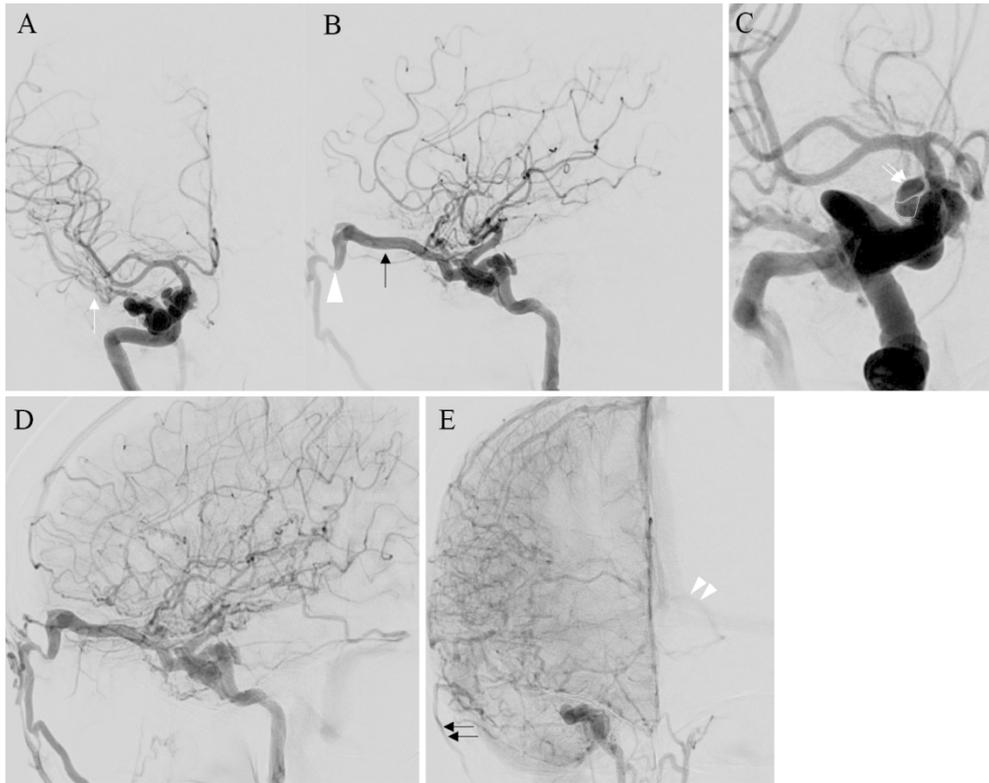


Fig. 2

131x102mm (300 x 300 DPI)

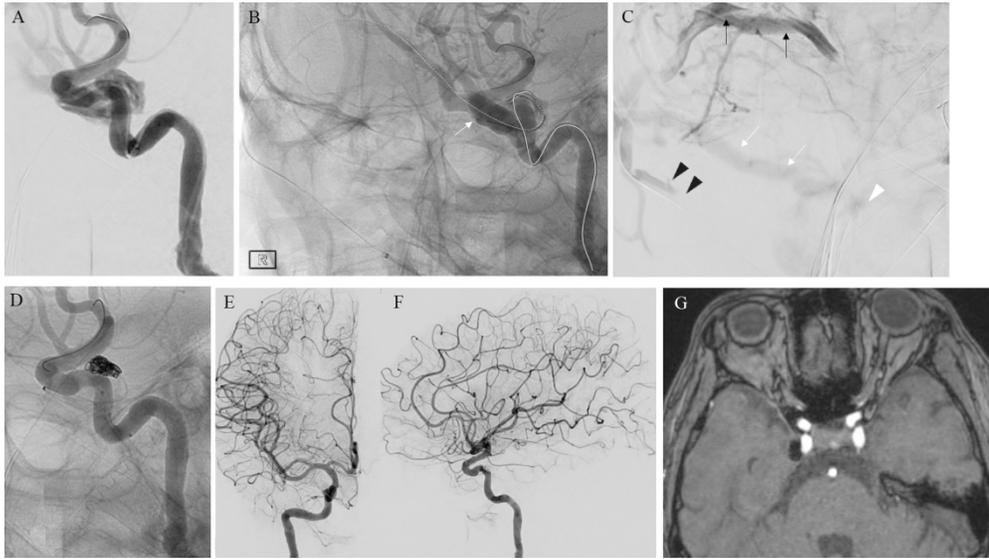


Fig.3

171x95mm (300 x 300 DPI)