

頭部外傷後 4 ヶ月を経過して発症した 外傷性内頸動脈海綿静脈洞瘻の 1 例

A case of traumatic carotid–cavernous fistula 4-month after head injury

前田 拓真^{1,2} 大川原 舞¹
越阪部 学¹ 山口 裕之¹
前田 高宏¹ 栗田 浩樹²

Takuma Maeda^{1,2}, Mai Okawara¹,
Manabu Osakabe¹, Hiroyuki Yamaguchi¹,
Takahiro Maeda¹, Hiroki Kurita²

¹ 大川原脳神経外科病院
脳神経外科

Department of Neurosurgery,
Ohkawara Neurosurgical Hospital

² 埼玉医科大学国際医療センター
脳卒中外科

Department of Cerebrovascular Surgery,
International Medical Center,
Saitama Medical University

Key words

- Head injury
- Traumatic carotid–cavernous fistula
- Delayed tCCF
- Transvenous embolization
- Selective embolization

Received November 30, 2022

Accepted December 26, 2022

Neurotraumatology 45: 61–65, 2022

Background: Traumatic carotid–cavernous fistula (tCCF) is rare arteriovenous shunt between carotid artery and cavernous sinus, resulting from head injury. The symptoms in tCCF typically present within several weeks after injury.

We report the rare case of delayed tCCF 4-month after head injury.

Case presentation: A 86-year-old man suffered right-sided head injury due to a fall while walking. He was diagnosed with left-sided subdural hematoma and contusion, but no cranial fractures. He had a symptom of headache and nausea, but no cranial nerve palsy. There were no evidence of cerebrovascular disease including tCCF on initial and 15-day follow-up MRI. Four-month after the injury, he suffered from sudden onset of diplopia. MRI revealed the right-sided tCCF draining to the ipsilateral superior ophthalmic vein, inferior petrosal sinus, and intercavernous sinus. Two-stage transvenous coil embolization was performed, and the tCCF was eliminated via selective occlusion. His diplopia was completely resolved at 1-month follow-up.

Conclusion: tCCF should be considered even in the chronic stage of head injury. We recommend a longer follow-up period of 6 months after a head injury.

I ————— はじめに —————

外傷性内頸動脈海綿静脈洞瘻 (traumatic carotid cavernous fistula: tCCF) は、頭部外傷により、内頸動脈と海綿静脈洞の間に異常な瘻孔を形成する疾患である¹⁾。tCCF は頭部外傷疾患全体で見ると比較的稀であり、その多くが 2 ヶ月以内の急性期

から亜急性期に発症する^{1,2)}。急激な眼症状を呈する場合が多く、適切な診断と迅速な治療が必要である³⁾。tCCF に対しては血管内治療が第一選択となる場合が多く、高い閉鎖率と報告されている⁴⁾。

今回、頭部外傷後 4 ヶ月を経過して発症した tCCF に対して、二期的に脳血管内治療を施行し寛解を得られた 1 例を経験したので報告する。

患者：86歳，男性

既往歴：60歳；食道癌（食道切除後），75歳；狭心症

生活歴：日本酒1合/日，喫煙歴なし

現病歴：散歩中に足を滑らせて転倒，右側頭部を受傷し，当院へ救急搬送された。狭心症の既往を有しており，バイアスピリン100mg/日を内服中であった。

入院時現症：意識清明，頭痛と嘔吐を認めたが，運動麻痺や感覚障害などの神経学的所見を認めなかった。また，眼球運動障害や複視，眼球結膜充血は認めなかった。

血液検査所見：PT-INR 1.24，APTT 29.9秒，血小板数 $169 \times 10^3 / \mu\text{L}$ と凝固能はいずれも大きな異常を認めなかった。

頭部CT：左側頭葉の脳挫傷，左急性硬膜下血腫を認めたが，頭蓋骨骨折は認めなかった (Fig.1A)。

頭部MRI：上記CT所見の他，右内頸動脈 (internal carotid artery: ICA) cavernous portion 内側にわずかな隆起を認めたものの，海綿静脈洞 (cavernous sinus: CS) の高信号域や上眼静脈 (superior ophthalmic vein: SOV) の拡張を認めなかった (Fig.1B, C, D)。

入院後経過：軽症頭部外傷であり，まずは保存的加療を行う方針とした。入院後，頭痛と嘔気は徐々に改善し，他に明らかな症状の出現を認めなかった。入院後15日目に撮像したフォローアップMRIにおいても，明らかな血管障害を認めず，患者は入院後26日目に後遺症なく自宅退院となった。退院後は無症状で経過していたが，受傷から4ヶ月経過後に突然の複視を自覚，翌日近医眼科を受診し当院へ紹介された。MRA，Time-of-flightでは両側CSに血流信号を認め，拡張した右SOVが描出され，逆流が示唆された (Fig.2A, B, C)。シャント疾患が疑われ再入院となり，診断目的で脳血管撮影を施行した。右ICAのcavernous portionから右CSへの高流量シャントを認め，右SOV，海綿間静脈洞 (intercavernous sinus: ICS)，両側下錐体静脈洞 (inferior petrosal sinus: IPS) へと流出していた (Fig.2D, E, F)。

治療経過：二期的に治療を行う方針とし，まずは眼症状の主要因と思われた右SOVとICSの経静脈的塞栓 (transvenous embolization: TVE) を行うこととした。全身麻酔下にヘパリン3000単位

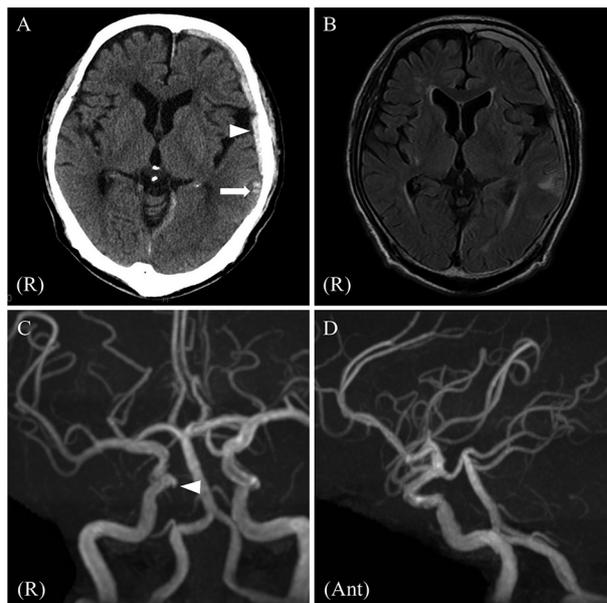


Fig.1

A: Initial CT showed left subdural hematoma (white arrowhead) and contusion of the left temporal lobe (white arrow).

B: MRI at the same level on the CT.

C and D: A-P and lateral view of MRA. A-P view revealed a small bump on the cavernous portion of the internal carotid artery (white arrowhead). There was no evidence of tCCF.

の全身投与を行い，7Fr Roadmaster (ニプロ，大阪) を右IPS入口部まで誘導した。Roadmasterから4.2Fr FUBUKI (朝日インテック，東京) を右IPS内に留置して，FUBUKIからRESTAR (メディコスヒラタ，大阪) をNEUROROUTE14 (メディコスヒラタ，大阪) の誘導で病変部に進め，合計13本のコイルを用いて右SOVとICSを塞栓した。塞栓血管への逆流は消失したが，シャントは一部残存し，右IPSに流出していた (Fig.3A, B)。複視は一時的に改善が得られたが，再増悪したため，初回治療から2ヶ月後に再治療の方針となった。初回治療と同様のシステムで，右CS先端部のシャントポイント付近と，後方のIPS開口部付近を合計5本のコイルで選択的に塞栓し，シャントは完全に消失した (Fig.3C, D)。

術後経過：術後，新規の脳神経症状は出現せず，虚血性合併症も見られなかった。術翌日から複視は改善傾向となり，術後3日目に後遺症なく自宅退院となった。術後1ヶ月で複視は完全に消失し，2年間のフォローアップでtCCFの再発は認めていない。



Fig.2

A and B: MRA at the onset of diplopia showed high intensity area in right cavernous sinus, superior ophthalmic vein (SOV), and inferior petrosal sinus.
 C: Time-of-flight revealed the high intensity on bilateral cavernous sinus (white arrows) and dilated right SOV (white arrowhead).
 D and E: Right internal carotid angiograms showed the direct carotid-cavernous fistula.
 F: Left oblique angiogram demonstrated the shunt point on cavernous portion (white arrowhead).

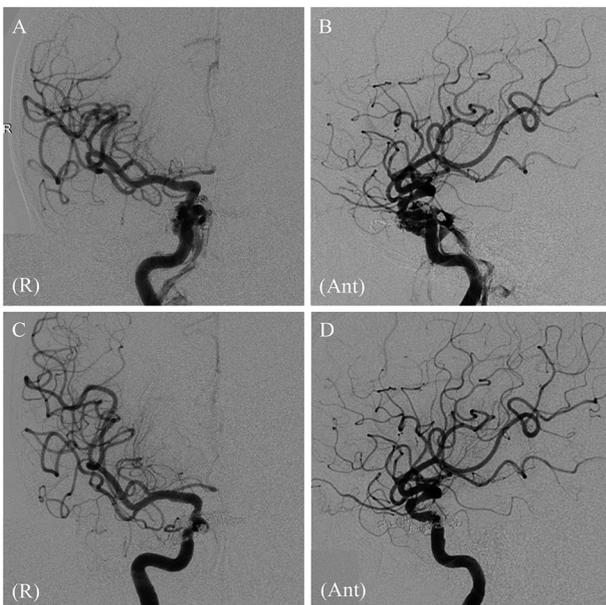


Fig.3

A and B: Right internal carotid angiograms after the first procedure. The shunt flow decreased significantly, although carotid-cavernous fistula still remained.
 C and D: Right internal carotid angiograms after the second procedure showed complete occlusion of the shunt point.

III 考 察

tCCFは、外傷性脳疾患のうち0.2~0.3%を占める稀な疾患で、若年男性に多いとされる^{1,2)}。内頸動脈に近接した頭蓋底骨折に合併することが多く、硬膜輪で固定された内頸動脈に外力が加わることで、異常な瘻孔が形成される⁵⁾。CCFの3主徴は①眼瞼下垂(72~98%)、②眼球結膜充血(55~100%)、③血管雑音(bruit, 71~80%)であり、他にも頭痛(25~89%)や複視(88%)などを呈するが、いずれも急速に進行するとされる³⁾。自然治癒は期待できず、治療が遅れば多くの場合視力障害などが後遺するため、迅速な診断・治療が必要である。

発症時期については、受傷から24時間以内が29%、24時間から2週間以内が16%、2週間から2ヶ月以内が42%と、その多くが受傷後の比較的早期に発症し、2ヶ月以上経過してから発症するものは13%と稀である^{6,7)}。これまで頭蓋骨骨折を伴う遅発性tCCFは報告されているものの^{8,9,10)}、本症例のように頭蓋骨骨折を伴わず、更に受傷か

ら4ヶ月経過しての遅発性tCCFは、我々が渉猟しえた限り報告がない。本症例はそのシャント部位と形態から、ICAのcavernous portionより分岐するmeningohypophyseal artery (MHA)の引き抜き損傷が原因と考えられた。初回の入院以降は頭部外傷のエピソードは有していない。また、初診時のMRIで認められたICA cavernous portion内側の小隆起は、DSAにおけるシャントポイントと一致していた。したがって、MRI所見はMHAの引き抜き損傷による外傷性脳動脈瘤であり、慢性期に破裂したものと推定した。外傷性脳動脈瘤の多くは仮性瘤であり、全頭蓋内動脈瘤のうち1%未満と報告されている¹¹⁾。このうちtCCFとして発症するものは極めて稀であり、また急性期に診断のつかなかつた無症候性の外傷性脳動脈瘤を診断することは容易ではない¹²⁾。MRIにおいては頭蓋底骨折の有無によらず、ICAのcavernous portionやsupraclinoid portionに特に注意を払い、外傷性動脈瘤が少しでも疑われれば、DSAなどのより空間分解能の高い検査を検討すべきである。tCCFによる眼症状では、本症例のように脳神経外科以外の診療科を受診する場合も多く、tCCFの診断に時間を要する場合も少なくない¹³⁾。したがって、頭蓋底骨折の合併にかかわらず、頭部外傷後6ヶ月程度は脳神経外科でのフォローアップを行うべきと考えられた。

tCCFの治療においては、頭蓋内血流を担保しつつ、シャントを確実に閉塞させることが重要である。そのため、内頸動脈を開存させながら、選択的にシャントポイントを閉塞することが理想的である。しかし、tCCFは高流量シャントであることが多く、選択的な塞栓術では不完全閉塞の危険性がある¹⁴⁾。特に瘻孔が大きい場合には、母血管閉塞 (parent artery occlusion: PAO) や sinus packingが必要となる場合も多い¹⁵⁾。PAOは最も確実な閉塞が得られるが、閉塞部遠位側の虚血性合併症のリスクがある。また、sinus packingはmass effectによる第Ⅲ～Ⅵ脳神経障害の危険がある¹⁶⁾。かつては離脱式バルーンを用いたシャント閉塞が行われていたが、現在では経動脈的、経静脈的、またはそれらを併用したコイル塞栓術が一般的である^{17,18,19)}。本症例においては、二期的に経静脈的な選択的コイル塞栓術を施行し、寛解が得られた。一期的なシャントの完全消失を目標とせず、複数回かつ選択的塞栓を行うことで、症状を改善しつつtight packingの回避が可能と考えられた。

最近ではflow diverter (FD)^{18,19)}、covered stent²⁰⁾、Onyx²¹⁾などの液体塞栓物質を用いた治療も報告されているが、適応外使用であり、神経毒性や抗血小板薬による出血リスクなどの安全性にも課題が残る。これらの新規治療については、安全性や有効性について更なる検討が必要である。

IV おわりに

頭部外傷の慢性期においても、tCCFの可能性を念頭におくべきである。頭部外傷後は、これまで考えられていたよりも中長期間のフォローアップが必要な可能性がある。早期診断と脳血管内治療により、良好な予後が期待できる。

著者全員は日本脳神経外科学会へのCOI自己申告を完了しています。本論文の発表に関して開示すべきCOIはありません。

文 献

- 1) Arseni C, Ghițescu M, Cristescu A, et al. : Traumatic carotido-cavernous fistulas. *Psychiatr Neurol Neurochir* 73: 237-242, 1970.
- 2) Debrun GM, Vinuela F, Fox AJ, et al. : Indications for treatment and classification of 132 carotid-cavernous fistulas. *Neurosurgery* 22: 285-289, 1988.
- 3) Ellis JA, Goldstein H, Connolly ES, et al. : Carotid-cavernous fistulas. *Neurosurg Focus* 32: E9, 2012.
- 4) Higashida RT, Halbach V, Tsai FY, et al. : Interventional neurovascular treatment of traumatic carotid and vertebral artery lesions: results in 234 cases. *AJR* 153: 577-582, 2012.
- 5) de Aguiar GB, Jory M, Silva JM, et al. : Advances in the endovascular treatment of direct carotid-cavernous fistulas. *Rev Assoc Med Bras* 62: 78-84, 2016.
- 6) 太田富雄：脳神経外科学 改訂12版，川原信隆，野崎和彦，吉峰俊樹，ほか（編），金芳堂，東京，2016，pp1965-1966.
- 7) Nguyen T, Cho YH, Jang YJ, et al. : Long delayed traumatic carotid-cavernous sinus fistula. *J Craniofac Surg* 24: e237-e239, 2013.
- 8) Jinbo Y, Jun L, Kejie M, et al. : Successful Transarterial Embolization of a Posttraumatic Fistula Between a Posterior Communicating Artery Aneurysm and the Cavernous Sinus: A Case Report. *Turk Neurosurg* 25: 776-778, 2015.
- 9) Ko JK, Lee SW, Lee TH, et al. : Traumatic Carotid Cavernous Fistula with a Connection between the Supraclinoid Internal Carotid Artery and Cavernous

- Sinus via a Pseudoaneurysm Presenting with Delayed Life-threatening Epistaxis. *NMC Case Rep J* 23: 43-46, 2017.
- 10) Oran I, Parildar M, Memis A, et al. : Posttraumatic intradural internal carotid artery-cavernous sinus fistula associated with ipsilateral carotid dissection. Transarterial embolization with detachable coils. *Interv Neuroradiol* 10: 63-68, 2004.
 - 11) Reddy SV, Sundt TM : Giant traumatic false aneurysm of the internal carotid artery associated with a carotid-cavernous fistula. *J Neurosurg* 55: 813-818, 1981.
 - 12) Karanam L, Alurkar A, Natarajan M, et al. : Endovascular coil occlusion of traumatic intradural aneurysm with presentation as carotid cavernous fistula. *J Clin Imaging Sci* 4: 11, 2014.
 - 13) Takahashi M, Toh T, Arakawa M, et al. : A case of a traumatic carotid-cavernous fistula associated with a jaw fracture. *Japanese Journal of Oral and Maxillofacial Surgery* 58: 52-56, 2012.
 - 14) Shimizu N, Nagaishi M, Fuji Y, et al. : The Endovascular Treatment of Traumatic Cavernous Sinus Arteriovenous Fistulas: A Single-center Experience. *Journal of Neuroendovascular Therapy* 11: 450-456, 2017.
 - 15) Gemmete JJ, Chaudhary N, Pandey A, et al. : Treatment of carotid cavernous fistulas. *Curr Treat Options Neurol* 12: 43-53, 2010.
 - 16) Kashiwazaki D, Kuwayama N, Akioka N, et al. : Delayed abducens nerve palsy after transvenous coil embolization for cavernous sinus dural arteriovenous fistulae. *Acta Neurochir* 156: 97-101, 2014.
 - 17) 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* 122: 123-128, 2019.
 - 18) Sumdani H, Aguilar-Salinas P, Avila MJ, et al. : Carotid Cavernous Fistula Treatment via Flow Diversion: A Systematic Review of the Literature. *World Neurosurg* 149: e369-e377, 2021.
 - 19) Ogilvy CS, Motiei-Langroudi R, Ghorbani M, et al. : Flow Diverters as Useful Adjunct to Traditional Endovascular Techniques in Treatment of Direct Carotid-Cavernous Fistulas. *World Neurosurg* 105: 812-817, 2017.
 - 20) Li K, Cho YD, Kim KM, et al. : Covered stents for the endovascular treatment of a direct carotid cavernous fistula: single center experiences with 10 cases. *J Korean Neurosurg Soc* 57: 12-18, 2015.
 - 21) Beer-Furlan A, Joshi KC, Brahimaj B, et al. : Transvenous Onyx Embolization of Carotid-Cavernous Fistulas: Mid- and Long-Term Outcomes. *J Neurol Surg B Skull Base* 82: 278-284, 2021.

■ 前田 拓真

大川原脳神経外科病院 脳神経外科
〒050-0082 北海道室蘭市寿町1丁目10-1