

血栓化した上眼静脈への direct puncture により 根治的治療を行った CCF の1例

和久井大輔¹⁾ 寺田友昭²⁾ 大島幸亮³⁾ 中村歩希¹⁾ 榊原陽太郎¹⁾
松森隆史¹⁾ 小林 敦¹⁾ 伊藤英道⁴⁾ 森嶋啓之⁵⁾ 田口芳雄¹⁾

A case of carotid cavernous sinus fistula treated with a direct puncture to the thrombosed superior ophthalmic vein

Daisuke WAKUI¹⁾ Tomoaki TERADA²⁾ Kosuke OSHIMA³⁾ Homare NAKAMURA¹⁾ Yohtarō SAKAKIBARA¹⁾
Takashi MATSUMORI¹⁾ Atsushi KOBAYASHI¹⁾ Hidemichi ITO⁴⁾ Hiroyuki MORISHIMA⁵⁾ Yoshio TAGUCHI¹⁾

- 1) Department of Neurosurgery, St. Marianna University School of Medicine, Yokohama City Seibu Hospital
2) Department of Neurosurgery, Wakayama Laborers' Hospital
3) Department of Neurosurgery, Ishioka Cardiology and Neurosurgery Hospital
4) Department of Neurosurgery, St. Marianna University School of Medicine
5) Department of Neurosurgery, Kawasaki City Tama Hospital

●Abstract●

Objective: We report a unique case of carotid cavernous fistula (CCF) with thrombosed draining vein, making usual transvenous approaches impossible.

Case presentation: This 69-year-old male patient presented with typical symptoms of CCF. Cerebral angiography revealed left CCF being fed by bilateral meningohypophyseal trunks (MHTs). Presumably due to anatomical variations of the cavernous sinus, attempts to access the shunting point by using the usual inferior petrosal sinus route failed. Thereafter peripheral draining vein thromboses might cause paradoxical worsening. Since urgent treatment appeared necessary, a transvenous coil embolization via direct puncture of the superior ophthalmic vein (SOV) was performed to obliterate the shunting point. Postoperatively that patient's visual symptoms recovered well.

Conclusion: Direct puncture of the SOV to obliterate CCF is a possible alternative choice of treatment when the usual transvenous access route was available. To reduce risk of complications we believe biplane angiographical devices, preparation of liquid embolic material, 20G elastic needles, and prevention of heparinization are necessary.

●Key Words●

carotid-cavernous fistula (CCF), direct puncture, thrombosed SOV

1) 聖マリアンナ医科大学横浜市西部病院 脳神経外科

(Received June 7, 2013 : Accepted September 16, 2013)

2) 和歌山労災病院 脳神経外科

3) 石岡循環器科脳神経外科病院 脳神経外科

4) 聖マリアンナ医科大学 脳神経外科

5) 川崎市立多摩病院 脳神経外科

<連絡先：和久井大輔 〒241-0811 神奈川県横浜市旭区矢指町 1197-1 E-mail: d2wakui@marianna-u.ac.jp>

緒言

頸動脈海綿静脈洞瘻 (carotid-cavernous fistula ; CCF) の根治的治療は通常経静脈的治療 (transvenous embolization ; TVE) が行われる。アプローチの経路は下錐体静脈洞 (inferior petrosal sinus ; IPS) や顔面静脈 (facial vein ; FV) であるが、これらでアクセスできない

い時には、上眼静脈 (superior ophthalmic vein ; SOV) の direct puncture を考慮する。

われわれは両側髄膜下垂体動脈幹 (meningohypophyseal trunk ; MHT) を main feeder とし、経過中に SOV 末梢の血栓化により、FV からのアクセスも不可能となり、IPS からのアプローチでも病変部へのアクセスが困難で、さらに paradoxical worsening が出現し、放射線



Fig. 1 Cerebral angiogram anteroposterior (AP) views (A: right carotid angiography (CAG), B: left CAG) revealing a carotid cavernous fistula fed by bilateral meningohypophyseal trunks (MHTs) and draining into the superior ophthalmic vein (SOV) followed by superficial veins including the left facial vein.

治療も適応でなくなったCCFを経験し、上眼瞼から direct puncture で眼窩深部のSOVに穿刺を行い、シャントポイントへマイクロカテーテルを誘導し根治を得た1例を経験した。CCFの alternative transvenous access routeとして有用と思われ、ここに報告する。

症例呈示

患者：69歳、男性。

主訴：視力低下・左眼球突出・複視。

既往歴：糖尿病・脂質異常症・白内障。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2012年4月左視力低下、複視があり近医眼科を受診、CCF疑いにて当科を紹介された。

所見：意識清明、左視力は0.1と低下し、結膜充血と眼球突出がみられた。下転を除き全方向性に眼球運動制限あり、上転制限が顕著であった。ヘルテル眼球突出計では左13mm、右10mmと有意な左右差を認めた。

経過：2012年7月血管撮影を行い、両側MHTをmain feederとするCCFがみられた(Fig. 1)。1ヵ月後、大腿静脈よりIPS経路でTVEを試みたが、海綿静脈洞(cavernous sinus: CS)内の隔壁により遠位にマイクロカテーテルが誘導できず終了した。前回の所見と異なり、

SOVの末梢が造影されず、経過中、SOVの末梢に血栓化が生じたものと考えられた(Fig. 2)。後日、再度IPS経路でTVEを行った。このときはCSの隔壁を越えてカテーテルを誘導できたがシャントポイントへのアクセスは不可能であった。

その後、paradoxical worseningを来し眼球充血、眼球運動制限、および眼球突出はいずれも悪化した。眼圧も40mmHgへ上昇し、全身ヘパリン化とステロイド、さらにダイアモックスやマンニトールの投与を行った。これにより、小康状態は得られたものの、失明を免れない状況と考えられた。十分な説明と同意のうえ、眼窩内のSOVをdirect punctureしてTVEを行うこととした。

血管内治療：バイプレーンのフラットパネル血管撮影装置を用いて全身麻酔下で行った。右大腿動脈に4Frシースを挿入し、4Fr診断用カテーテルを左内頸動脈へ留置した。バイプレーンで正面管球をやや尾側に振り、上眼瞼に小さな皮膚切開を置いた。ロードマッピング下、20Gエラスト針を当初はorbital roofに向けて穿刺し徐々に眼球側に針を向けるようにしてSOVを穿刺した(Fig. 3)。穿刺時に内筒を抜くと拍動性の血液のback flowがあった。外筒よりCHIKAI 0.010'(朝日インテック、東京)を先行させたExersior SL-10(Stryker,

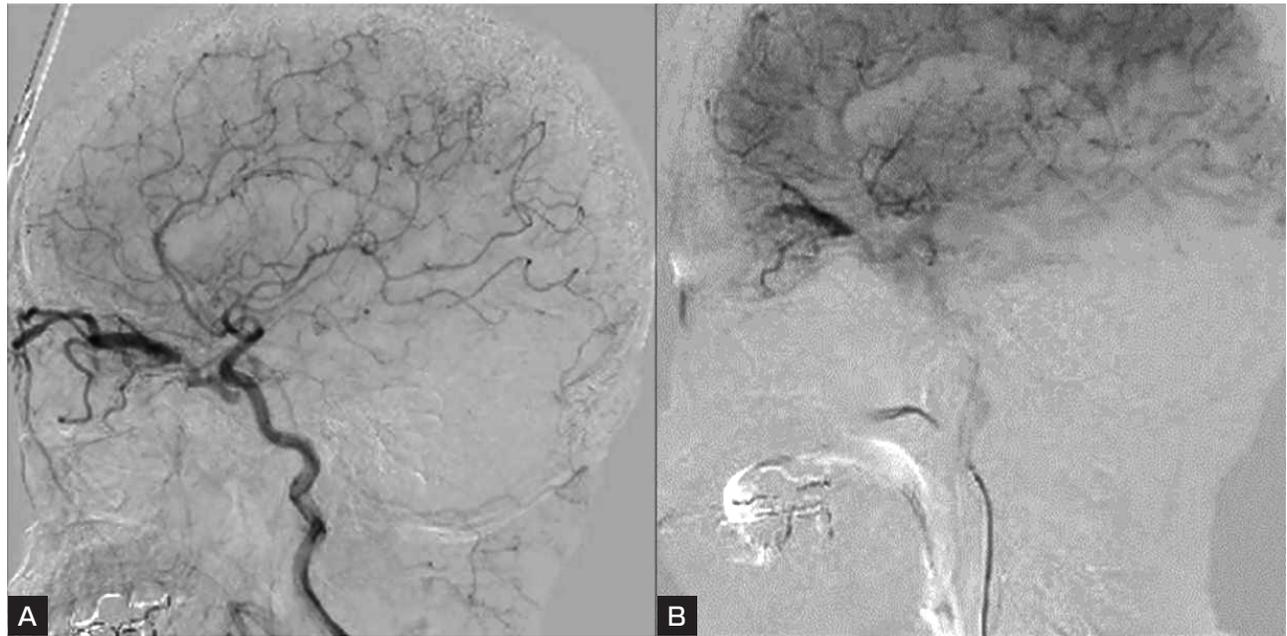


Fig. 2
Cerebral angiogram lateral views (A: initial, B: first transvenous embolization). Note that the peripheral part of the SOV cannot be visualized in the right photo.



Fig. 3
Plain X-ray films (A: AP view, B: lateral view). A 20G intravenous sheathed needle was introduced into the left SOV under fluoroscopic guidance with road-map mode.

Kalamazoo, MI, USA) を挿入すると、比較的容易にシャントポイントまでマイクロカテーテルを誘導することができた。シャントポイントには、Target 360 soft (Stryker)

3 mm × 6 cm 1 本、3 mm × 8 cm 1 本、Galaxy complex XS (Codman & Shurtleff, Johnson & Johnson, Raynham, MA, USA) 3 mm × 6 cm 1 本、Target Helical

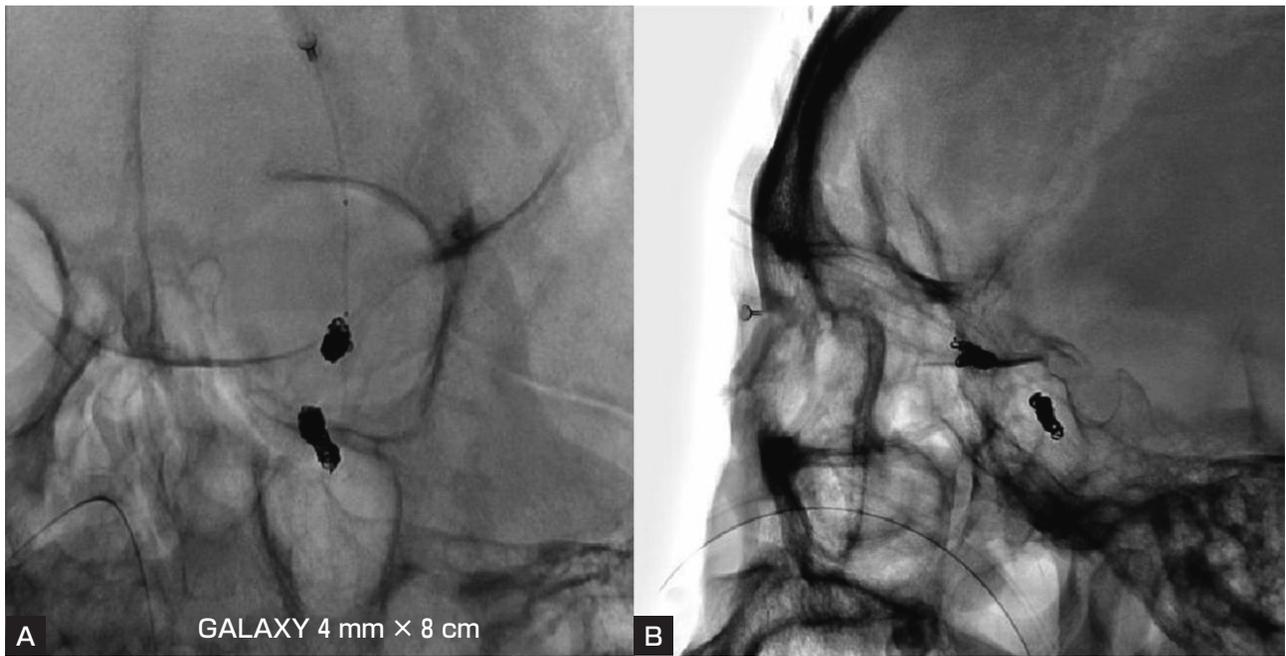


Fig. 4
Plain X-ray films (A: AP view, B: lateral view) showing placed coils to the shunting point as well as the site of needle insertion into the SOV.



Fig. 5
Cerebral angiogram after embolization (A: AP view, B: lateral view) showing complete obliteration of the carotid cavernous fistula.

Ultra (Stryker) 2 mm × 6 cm 2本, 2 mm × 4 cm 1本を留置した。さらにSOV 刺入部の止血の目的で刺入部近傍へカテーテルを戻してGalaxy complex fill (Codman) 4 mm × 12 cm, Galaxy complex XS 4 mm × 8 cm 2本

を留置した (Fig. 4)。これらによって病変は消失し手術を終了した (Fig. 5)。ヘパリン化は行わなかったが、合併症として眼瞼に小血腫がみられた。なお、準備した液体塞栓物質を使用することはなかった。

術後経過：術後2日目まで眼瞼腫脹をみたが、その後は改善し、1ヵ月後には眼球突出・眼球充血は消失した。複視は自覚的に認めるものの、眼球運動制限は他覚的にはみられない。左視力も0.6まで改善した。治療6ヵ月後の脳血管撮影上、再発はない。

考 察

CCFは、Barrowらにより4型に分類される¹⁾。多くは血管内治療が第一選択となり、feederとして内頸動脈の硬膜枝を含むtype B、DではTAEによる根治は困難とされる¹¹⁾。したがって、TVEが選択されることが多い。本症例も両側MHTがmain feederになっており、安定したカテーテル留置が困難なためTAEは考慮しなかった。また経過中にSOV末梢の血栓化が生じ、FVからのアプローチも不能となった。2回にわたるIPS経由でのTVEを施行したが、シャントポイントに達することができなかった。その後、SOV血栓化に起因する症状悪化(paradoxical worsening)がみられた。失明の可能性もあったため可及的早期に静脈圧を低下させる必要があり、病変消失までに長期間を要する^{5,7)}放射線治療は適応にならなかった。以上の経過より末梢側が血栓化しているSOVへのdirect punctureを行う方針とした。

Direct punctureについては多くの文献がある^{2-4,6,8-10,12-14)}が、大多数の症例でドレーナージルートはFVまで存在した。SOV末梢が血栓化し、SOV中枢側にdirect punctureでアクセスした症例はChenらの1例のみであった³⁾。

実際の手技としては眼瞼部への局所麻酔下でも施行可能ではあるが、患者の不安感や、体動がないなどの理由から全身麻酔下が望まれる。バイブレーション透視下で手技を行い、正面管球はSOVの走行を追うため、やや尾側へ振る。側面管球は眼窩および周囲の空間を描出して、刺入前のエラストー針の方向も透視下で確認できる位置にセッティングした。10タイプのマイクロカテーテルは20Gのエラストー針の外筒を十分に通過できるため、これ以上の太さのエラストー針はSOVのコイルパッキングでは不要と思われる。過去の報告においてElhammadyら⁴⁾は20G腰椎穿刺針を使用していたが、他は18Gエラストー針の使用が多かった^{6,8,10,13,14)}。エラストー針が適切にSOVに刺入されれば血管壁を貫通する感触と拍動性の血液のback flowがある。術者はエラストー針の外筒を支持し、助手が止血弁を付け皮膚へ固

定する。動静脈短絡のあるSOVは屈曲や蛇行していることもあり、エラストー針が刺入できたとしてもシャントポイントまでマイクロカテーテルが進まないことがあることは術前、患者によく説明しておくべき事項である。本症例ではシャントポイントをコイルでpackingできたが、マイクロカテーテルをシャントポイントまで誘導できない場合には液体塞栓物質の使用を考慮する^{4,14)}。また、本症例ではSOVのエラストー針刺入部にもpackingを行い、眼窩内出血を予防した。

合併症には眼窩内出血、術後の眼瞼部の皮下出血、眼球損傷、視神経や眼球運動神経の損傷、内頸動脈損傷が挙げられる^{4,6,8-10,12-14)}。また視神経や眼動脈の損傷を避けるために下眼瞼からのdirect punctureを行っている症例や^{4,13,14)}、止血困難で開頭術へ移行した報告⁹⁾もある。血管内治療では全身ヘパリン化が通例であるが、我々は出血性合併症を防ぐために、全身ヘパリン化をしなかった。Quinonesら¹²⁾も同様にヘパリン化を行っていない。

本法の適応に関し、既述のようなリスク回避のために経大腿静脈経由での治療が困難な場合に限ったalternative transvenous access routeとして用いるべきであろう^{2,3,6,12,13)}。本症例を通じ、われわれもChenらと同じく、末梢側が血栓化したSOVへもdirect punctureが可能³⁾と考えるが、血栓化したSOVは穿刺に難渋する可能性がある⁶⁾ことや、眼窩深部へのdirect punctureは危険度が高い²⁾といわれており、術前に十分に患者および家族へ説明し同意を得ておく必要がある。

結 語

血栓化したSOVを流出路とするCCFの1例を経験した。IPS経由ではアクセス困難であり、paradoxical worseningにより可及的早期に治療が必要となったため、SOVをdirect punctureしてTVEを行い良好な結果が得られた。

手技自体は煩雑ではないが、いくつかの注意点があるため、ここに報告した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

文 献

- 1) Barrow DL, Spector RH, Braun IF, et al: Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous fistulas. *J Neurosurg* 62:248-256, 1985.

- 2) Benndorf G, Bender A, Campi A, et al: Treatment of cavernous sinus dural arteriovenous fistula by deep orbital puncture of the superior ophthalmic vein. *Neuroradiology* **43**:499-502, 2001.
- 3) Chen WH, Tsai IC, Huang HC, et al: Transcutaneous puncture of the superior ophthalmic vein for embolization of dural carotid-ophthalmic fistula. *Interv Neuroradiol* **14** (Suppl. 2):9-11, 2008.
- 4) Elhammady MS, Peterson EC, Aziz-Sultan MA: Onyx embolization of a carotid cavernous fistula via direct transorbital puncture. *J Neurosurg* **114**:129-132, 2011.
- 5) Guo WY, Pan DH, Wu HM, et al: Radiosurgery as a treatment alternative for dural arteriovenous fistulas of the cavernous sinus. *AJNR* **19**:1081-1087, 1998.
- 6) 林健太郎, 北川直毅, 森川実, 他: 上眼静脈穿刺に難渋した海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の2例. *脳神経外科* **36**:165-170, 2008.
- 7) 木田義久, 吉本真之, 長谷川俊典: 頭蓋内硬膜動静脈瘻のガンマナイフ治療. *Jpn J Neurosurg* **17**:376-383, 2008.
- 8) Kurata A, Suzuki S, Iwamoto K, et al: Direct puncture approach to the extraconal portion of the superior ophthalmic vein for carotid cavernous fistulae. *Neuroradiology* **51**:755-759, 2009.
- 9) Levibovich I, Modjtahedi S, Duckwiler GR, et al: Lessons learned from difficult or unsuccessful cannulations of the superior ophthalmic vein in the treatment of cavernous sinus dural fistulas. *Ophthalmology* **113**:1220-1226, 2006.
- 10) Luo CB, Teng MM, Chang FC, et al: Transorbital direct puncture of the posterior cavernous sinus through the internal carotid artery for embolization of isolated cavernous sinus dural arteriovenous fistula. *J Neurointerv Surg* doi: 10.1136/2011-010130, 2012.
- 11) 嶺井聡, 金城竜也, 銘苅晋, 他: 特発性頸動脈海綿静脈洞瘻の一例. *沖縄医報* **40**:345-350, 2004.
- 12) Quinones D, Duckwiler G, Gobin PY, et al: Embolization of dural cavernous fistulas via superior ophthalmic vein approach. *AJNR* **18**:921-928, 1997.
- 13) White JB, Layton KF, Evans AJ, et al: Transorbital puncture for the treatment of cavernous sinus dual arteriovenous fistulas. *AJNR* **28**:1415-1417, 2007.
- 14) Workman MJ, Dion JE, Tong FC, et al: Treatment of trapped CCF by direct puncture of the cavernous sinus by infraocular transSOF approach. *Interv Neuroradiol* **8**:299-304, 2002.

要 旨

JNET 7:345-350, 2013

【目的】治療困難な頸動脈海綿静脈洞瘻 (carotid-cavernous fistula ; CCF) に対し, 血栓化した上眼静脈 (superior ophthalmic vein ; SOV) の direct puncture により経静脈的治療 (transvenous embolization ; TVE) を行った症例を報告する。【症例】69歳, 男性。典型的症状から CCF と診断し, 下錐体静脈洞経由の TVE ではアクセス困難であった。経過中 SOV の血栓化による paradoxical worsening を来し, 早期治療を要した。末梢部が血栓化した SOV への direct puncture による TVE で良好な結果が得られた。【考察】Direct puncture は本症例に有用であったが, 眼窩深部への穿刺については合併症の報告があり, alternative transvenous access route として用いるべきである。