

1 症例報告
2
3 経静脈的アプローチにより1本のコイルで瘻孔を塞栓した非外傷性
4 direct CCFの1例
5
6 林 宣秀、岡田 秀雄、戸村 九月、佐々木 貴浩、桑田 俊和
7
8 和歌山労災病院 脳神経外科
9
10 連絡著者：林 宣秀 和歌山労災病院 脳神経外科
11 〒640-8505 和歌山市木ノ本 93-1
12 TEL：073-451-3181 FAX：073-452-7171
13 E-mail：nbh-hayashi@wakayamah.johas.go.jp
14
15 キーワード 1: direct carotid cavernous fistula
16 キーワード 2: target embolization
17 キーワード 3: Allcock test
18 キーワード 4: transvenous approach
19
20 宣言：『本論文を、日本脳神経血管内治療学会 機関誌「JNET Journal of
21 Neuroendovascular Therapy」に投稿するにあたり、筆頭著者、共著者によ
22 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
23 す。』
24

論文種別：症例報告

題名：経静脈的アプローチにより1本のコイルで瘻孔を塞栓した非外傷性 direct CCF の1例

Transvenous target embolization for a small sized, non-traumatic direct carotid-cavernous fistula using a single coil: Technical Case Report

著者名：

林 宣秀、岡田 秀雄、戸村 九月、佐々木 貴浩、桑田 俊和
Nobuhide Hayashi, Hideo Okada, Nagatsuki Tomura, Takahiro Sasaki,
Toshikazu Kuwata

所属施設名：和歌山労災病院 脳神経外科

Department of Neurosurgery, Wakayama Rosai Hospital

連絡著者：林 宣秀 和歌山労災病院 脳神経外科

〒640-8505 和歌山市木ノ本 93-1

Corresponding author : Nobuhide Hayashi

Department of Neurosurgery, Wakayama Rosai Hospital

93-1, Kinomoto, Wakayama, Wakayama, 640-8505, Japan

TEL : 073-451-3181 FAX : 073-452-7171

E-mail : nbh-hayashi@wakayamah.johas.go.jp

キーワード 1: direct carotid cavernous fistula

キーワード 2: target embolization

キーワード 3: Allcock maneuver

キーワード 4: transvenous approach

宣言：『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】瘻孔の小さな direct CCF に対して経静脈的に選択的塞栓術を施行した 1 例を報告する。

【症例】外傷歴のない 74 歳女性、耳鳴と眼症状で発症した右 direct CCF。前および中大脳動脈末梢の順行性血流は保たれ、Allcock test で内頸動脈 C3 部から海綿静脈洞に接続する瘻孔の描出を確認した。内頸動脈をバルーンで保護しながら経静脈的に瘻孔の選択的塞栓を行い、1 本のコイルのみで短絡血流は消失した。

【結論】瘻孔の小さな direct CCF では選択的塞栓により治癒可能な症例が存在する。診断過程で瘻孔の大きさを予測し瘻孔部位を明瞭に描出させることが重要である。

【緒言】

Direct carotid-cavernous fistula(CCF)の多くは high flow で、治療に難渋することが少なくない。しかし瘻孔サイズが小さい症例では、コイルによる選択的な塞栓術が可能な場合がある。今回、経静脈的に瘻孔部位を1本のコイルのみで塞栓しえた非外傷性 direct CCF の1例を経験したので報告する。

【症例呈示】

74歳女性。2ヶ月来の拍動性右耳鳴と2週間前からの複視のために当科を紹介受診した。右眼球結膜軽度充血と右外転神経麻痺がみられ、右眼窩から耳介後部にかけて血管雑音を聴取した。MRAで右 cavernous sinus (CS)と右 inferior petrosal sinus(IPS)の描出を認め、CCFを疑い脳血管撮影を施行した。

脳血管撮影

右 internal carotid artery (ICA) 撮影では動脈相で右 CS の描出があり、末梢では anterior cerebral artery (ACA)と middle cerebral artery (MCA)の順行性血流を認めた (Fig1. A, B)。主な静脈流出路は右 IPS であったが、一部にシルビウス静脈への逆流がみられた (Fig1. C)。同側の superior orbital vein (SOV)や superior petrosal sinus(SPS)、対側 CS の描出は認めず、外頸動脈系の関与もなかった。Barrow 分類では direct CCF であり Type A と診断した¹⁾。左 ICA 撮影による Matas test では anterior communicating artery (A-com)欠失のため瘻孔の描出がみられなかったが、Allcock test 側面像では posterior communicating artery (P-com)を介して瘻孔部位の描出を認めた。瘻孔は右 ICA(C3部)と CS 前半部をつなぐ半月状の shunted pouch と

して存在した。(Fig.1D)。

治療計画

皮質静脈逆流を伴う症候性の direct CCF であり、血管内治療の適応と判断した。右 ICA 撮影で同側 ACA、MCA とともに順行性に描出されていることから瘻孔の大きさは小さいと推測し、Allcock test で描出された瘻孔部位にアクセスすれば、瘻孔の選択的塞栓が可能と考えた。MRA 元画像からは右 ICA(C3部)背側から右 CS 腹内側へ接続する部位に瘻孔の存在が疑われた (Fig.2)。治療の順序としては、シルビウス静脈への流出路を最初に塞栓し、次に瘻孔部位にアクセスしてコイルによる選択的塞栓を行う方針とした。内頸動脈側はコイルの突出を防ぐために動脈瘤塞栓用のコンプライアントバルーンを使用し、コイルの migration を防ぐために動脈側ではバルーンつきのガイディングカテーテルを用いることにした。静脈側から瘻孔部位へのアクセスが不能であった場合に備え、ガイディングカテーテルは内径の大きなものを準備した。また、Allcock test のために vertebral artery (VA) にも診断用カテーテルを準備した。

血管内治療

全身麻酔下に塞栓術を施行した。右大腿動脈に 9Fr シース、左大腿動脈に 4Fr シース、右大腿静脈に 6Fr シースを留置し、全身へパリン化を行った。右 ICA に 9Fr Optimo (東海メディカルプロダクツ, 愛知)、右 VA に 4Fr BHW(カテックス, 大阪)、右内頸静脈に 6Fr shuttle sheath (Cook Medical, Bloomington, IN, USA)、同軸で右 IPS に 6Fr Envoy STR (Codman&Shurtleff, Johnson&Johnson, Raynham, MA, USA)を誘導した。右 IPS より CS 内に CHIKAI 14 200cm (朝日インテック, 愛知)と SL10 45°(Stryker, Kalamazoo, MI, USA)を誘導し、シルビウス静脈への流出路を

3本のコイル (Axium 3mm×8cm(eV3 Covidien, Irvine, CA, USA), Axium 2.5mm×6cm(eV3 Covidien, Irvine, CA, USA), ED coil 2mm×8cm (カネカメディックス, 大阪)) を用いて塞栓した(Fig.3A, B)。次に右 ICA のバルーン閉塞による Allcock maneuver で右 VA 撮影を行って瘻孔部位を描出させ、ロードマップ下に瘻孔を探ると、瘻孔を越える形で右 ICA へ CHIKAI 14 を誘導することができた。そこで、CHIKAI 14 に追従させる形で SL10 45°を瘻孔部位の直近まで誘導し(Fig.4A)、SL10 45°からの造影で流出路として全体が描出されていることを確認した(Fig.4B)。右 ICA (C3-C4 部) に HyperGlide 4×10mm (eV3 Covidien, Irvine, CA, USA) を inflate した状態 (Fig.4C) で、1 本目のコイルとして Galaxy 3.5mm×7.5cm (Codman&Shurtleff, Johnson&Johnson, Raynham, MA, USA) を用いたところ、コイルは ICA 内へ逸脱することなく fistula に連続する半月状の shunted pouch を塞ぐ形で留置された (Fig.4D)。動脈血流によるコイルの migration が危惧されたので、Optimo、HyperGlide の 2 つのバルーンを inflate した状態から HyperGlide、Optimo の順に段階的に deflate して、コイルが移動しないことを確認した。再び 2 つのバルーンを inflate してコイルを離脱し、離脱後も同様の手順で 2 つのバルーンを deflate して migration のないことを確認した。この 1 本の塞栓のみで短絡血流は完全に消失し (Fig.5 A, B)、その後、数日間かけて臨床症状も徐々に消失した。6 ヶ月後のフォロー脳血管撮影でも再発所見はなく、無症状で経過している。

【考察】

Direct CCF の本質的な治療は瘻孔部位の閉鎖であり、瘻孔の大きさや形状によっては選択的な塞栓術が奏功する場合がある。本症例では術前

の診断撮影により瘻孔が小さいことを予測でき、Allcock test で瘻孔部位を推定できたので、選択的塞栓による治療が可能であった。塞栓手技としては静脈側からアプローチし、動脈側にコンプライアントバルーンを使用することで1本のコイルのみで瘻孔を tight packing でき、瘻孔を閉塞させることができた。

瘻孔が小さいことを予想するには、診断撮影での所見が重要である。ACA, MCA の両方が描出されれば small size、MCA のみの描出であれば medium size、ACA, MCA いずれも描出されない場合は large size と分類し、頻度は small size が 12.8%との報告がある²⁾。また内頸動脈撮影において末梢まで充分血流があるものを small size、末梢血流の減少や消失はあるものの対側 ICA からの瘻孔描出のないものを medium size、末梢血流がなく対側 ICA や P-com からも瘻孔描出があるものを large size と分類し、頻度は small size が 21.9%との報告もある³⁾。これらの分類は A-com や P-com の発達の個体差を考慮していないという欠点はあるが、瘻孔の大きさを簡便に予測しうる有用な方法である。

瘻孔部位の描出には Allcock test が有用であった。瘻孔は Allcock test 側面像で ICA(C3 部)から CS に連続する狭小部位として描出されていた。P-com が発達していなければ Matas maneuver で評価することになるが、Allcock test の方が側面像での対側 ICA の重複がないことから瘻孔部位を描出しやすい。Matas あるいは Allcock maneuver に 3D Rotational Angiography (3DRA)を用いた撮影を施行すれば、瘻孔部位に対する良好な working projection を確保できる可能性がある⁴⁾⁵⁾。瘻孔が大きい場合には瘻孔部位の明瞭な描出が困難である⁵⁾⁶⁾が、Allcock test 施行時に ICA からの用手脱血を併用したり、バルーン付きガイディングカテーテルに

て ICA を閉塞させ造影剤を緩徐注入することで、瘻孔に流れる造影剤の量をコントロールして瘻孔部位の描出が可能になったとの報告がある⁶⁾。本症例では MRA 元画像から瘻孔部位の立体的位置を把握したが、フラットパネル型血管撮影装置で造影 cone beam CT を施行すれば骨構造との関連も含めて、より詳細に解剖学的構造を検討できる可能性がある。

瘻孔の小さな direct CCF に対しては、コイルによる塞栓が有効である。経静脈的アプローチで、slow flow の direct CCF にコイルで治療できた報告もある⁷⁾が、文献的には経動脈的塞栓術の報告が多い^{3),8)~10)}。小さな瘻孔をもつ direct CCF 12 例に対して経動脈的にコイル塞栓を施行し平均 8.4 本(2-16 本)のコイルで治療した報告⁹⁾や、ICA にバルーンを併用し経動脈的塞栓を施行して平均 11.2 本(6-18 本)のコイルで治療した 5 例の報告¹¹⁾がある。いずれも許容できないほど多くのコイルを用いているわけではないが、経動脈的アプローチでは静脈洞内でのコイルの安定が難しく、本数が多くなりがちである。静脈側からマイクロカテーテルを誘導すれば ICA 側をバルーンで閉塞して壁を作り、より狭い範囲で瘻孔部位を塞栓できることから、本症例では経静脈的アプローチを選択した。バルーンの使用については ICA へのコイル逸脱と脳虚血性合併症を予防し¹²⁾、血流によるコイルの migration を防ぐ利点がある。一方で、経動脈的アプローチの有用性が期待できるケースとしては、経静脈的に瘻孔部位へのアクセスが困難な場合、瘻孔が大きく経静脈的アプローチのみで瘻孔部位の tight packing が困難な場合、ICA へのバルーン誘導が困難な場合などが考えられる。

瘻孔の大きな direct CCF の治療は困難なことが多い。かつては離脱式バルーンが使用されたが技術的には決して簡単なものではなく、早期離

脱による合併症やバルーンの破裂による再発¹³⁾など不成功率が5-10%にのぼり¹⁴⁾、現在では使用されていない。大きな瘻孔をコイルで塞栓する場合には sinus packing を要する場合があります、脳神経麻痺出現の危険性が報告されている¹⁵⁾。Etylene vinyl oxide copolymer(Onyx) (eV3 Covidien, Irvine, CA, USA)や N-butyl-2-cyanoacrylate(NBCA)などの液体塞栓物質の有用性も報告されているが、glue migration による合併症の危険がある¹⁶⁾。いずれの塞栓物質を用いても sinus packing が必要になるケースでは、手技の後半に SOV や皮質流出路へのアクセスが困難となる場合があります、危険な静脈流出路の塞栓を優先することが無難である。本症例でも皮質静脈流出路の塞栓を最初に行ったが、治療結果から考えればその必要はなかったのかもしれない。また、動脈側からアクセスすることを考慮して9 Fr のバルーン付きガイディングカテーテルを用いたが、コンプライアントバルーンに加えマイクロカテーテルを1本動脈側から用いたとしても7 Fr で充分であった。

非外傷性 direct CCF の成因については脳動脈瘤破裂・Ehlers-Danlos Syndrome・線維筋性異形成・特発性・医原性（経鼻的内視鏡手術・脳血管内治療）などがある⁸⁾¹⁷⁾。本症例では外傷歴や他の疾患の合併はなく、血管撮影で明らかな脳動脈瘤形成を認めなかったために特発性であると診断した。特発性 direct CCF の原因は明らかではないが、壁脆弱性による亀裂により direct CCF に陥る可能性のあることが推察されている¹⁸⁾。本症例では皮質静脈への逆流所見があり、さらに拍動性右耳鳴・右眼球結膜充血・右外転神経麻痺による複視を認め血管内治療を適応した。Indirect CCF では治療なしに自然閉塞することもあるが、direct CCF は high flow で自然閉塞は望めない⁸⁾、とされている。本症例では右 IPS を

經由した下方への静脈流出が主体で皮質静脈逆流は比較的軽度であったが、長期にわたる圧負荷により静脈洞の血栓化が進行すれば SOV への逆流や皮質静脈逆流が増大して眼球症状の悪化や静脈うっ血あるいは頭蓋内出血を生じる危険性がある。外傷性 direct CCF の報告では皮質静脈逆流の合併は 32 例中 20 例(62.5%)にのぼり⁴⁾、皮質静脈逆流の存在は dural arteriovenous fistula(dAVF)と同様に、頭蓋内出血のリスクと考えられている。

小さな瘻孔による direct CCF では選択的コイル塞栓による治癒が期待できる症例が存在する。瘻孔サイズの予測と瘻孔部位の描出が direct CCF における治療のキーポイントである。本症例では診断撮影で瘻孔サイズが小さいことを予測でき、Allcock test で瘻孔を描出できたことが選択的塞栓の成功につながった。動脈側にバルーンを用い静脈側からマイクロカテーテルを誘導することで、少ないコイルで瘻孔を閉鎖することが可能であった。

【結語】

経静脈的アプローチにより 1 本のコイルで瘻孔部位を選択的に塞栓した非外傷性 direct CCF の 1 例を報告した。術前に瘻孔の大きさと部位を評価することが重要で、本症例では Allcock test が有用であった。

利益相反開示：筆頭著者および共著者全員に利益相反はない。

【文献】

1) Barrow DL, Specter RH, Braun IF et al: Classification & treatment of

- spontaneous carotid cavernous fistula. *J Neurosurgery* 1985; 62: 248-256
- 2) Chong T C, Dang N, Vo T D et al: Direct traumatic carotid cavernous fistula : angiographic classification and treatment strategies study of 172cases. *Interventional Neuroradiology* 2014; 20: 461-475
 - 3) Malan J, Lefeuvre D, Mngomezulu V et al: Angioarchitecture and treatment modalities in posttraumatic carotid cavernous fistulae. *Interventional Neuroradiology* 2012; 18: 178-186
 - 4) Kohyama S, Ishihara S, Yamane F, et al: Three-Dimensional Digital Subtraction Angiography for endovascular treatment of direct carotid-cavernous fistula. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2010; 50: 404-406
 - 5) Nishio A, Kawakami T, Mitsuhashi Y, et al: Usefulness of intravascular ultrasonography monitoring of coil embolization for traumatic direct carotid-cavernous fistula. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2009; 49: 604-607
 - 6) Tsuji K, Nakagawa N, Fukawa N, et al: A novel technique for identifying the fistulous point in a direct carotid-cavernous fistula. *Journal of Neuroscience* 2016; 25: 152-155
 - 7) Su I-C, Cruz JP, Krings T: Low flow direct carotid-cavernous fistula caused by rupture of an intracavernous carotid aneurysm. *Interventional Neuroradiology* 2014; 20: 476-481
 - 8) Aralasmak A, Karaali K, Cevikol C et al: Venous drainage patterns in carotid cavernous fistulas. *ISRN Radiology* 2014; ID 760267 7 pages

- 9) Chao-B L, Michael M-H T, Chung-J L et al: Transarterial embolization of traumatic carotid-cavernous fistulae by Guglielmi detachable coils. A seven-year experience. *Interventional Neuroradiology* 2008; 14(Suppl 2): 5-8
- 10) Kobayashi N, Miyachi S, Negoro M et al: Endovascular treatment strategy for direct carotid-cavernous fistulas resulting from rupture of intracavernous carotid aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol* 2003; 24: 1789-1796
- 11) Andrade G, Souza MLPD, Marques R et al: Endovascular treatment of traumatic carotid cavernous fistula with balloon-assisted sinus coiling. *Interventional Neuroradiology* 2013; 19: 445-454
- 12) Renzis AD, Nappini S, Consoli A et al: Balloon-assisted coiling of the cavernous sinus to treat direct carotid cavernous fistula. A single center experience of 13 consecutive patients. *Interventional Neuroradiology* 2013; 19: 344-352
- 13) Hamid RS, Haq Tu, Shamim MS et al: Endovascular approach as primary treatment for traumatic carotid cavernous fistula: local experience from Pakistan. *JPMA* 2011; 61: 989-993
- 14) Naesens R, Mestdagh C, Breemers M, et al: Direct carotid-cavernous fistula : a case report and review of the literature. *Bull Soc Belge Ophtalmol.* 2006; 299: 43-54
- 15) 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

16) Ramalingaiah AH, Prasad Chandrajit, Sabharwal PS, et al:

Transarterial treatment of direct carotico-cavernous fistulas with coils and Onyx. *Neuroradiology* 2013; 55: 1213-1220

17) Mergeani A, Popescu D, Laza C et al: A review on endovascular techniques for treatment of direct post-traumatic carotid-cavernous fistula supported by case presentations. *A journal of clinical medicine* 2012; vol.7 No.4 332-338

18) 太田 富雄, 松谷 雅生 編集 *脳神経外科学* 改訂 10 版 I 京都市 金芳堂, 2008; 671

Figure legends

Fig.1 Diagnostic angiograms

A: and B: Anteroposterior (A) and lateral view (B) of right carotid angiogram is shown. Cavernous sinus and right inferior petrosal sinus is opacified in early arterial phase. Ipsilateral anterior and middle cerebral artery is fully illustrated.

C: Anteroposterior view of right internal angiogram in late arterial phase is shown. Retrograde leptomeningeal venous drainage into superficial middle cerebral vein is illustrated (black arrows).

D: Lateral view of Allcock test illustrates the fistulous site (black arrowhead).

Fig.2

A source image of MRA. Dorsal side of right internal carotid artery and ventral side of cavernous sinus is connected through a small fistula (white arrowhead)

Fig.3

A: Cortical venous reflux into superficial middle cerebral vein is illustrated.

B: 3 coils (Axium (3mm×8cm), Axium (2.5mm×6cm), ED coil (2mm×8cm)) are placed in the outlet of the cortical drainage.

Fig.4 Access to the fistulous site and embolization

A: Tip of the microguidewire (black arrow) is advanced into right carotid artery from venous side through the fistula, and tip of the microcatheter (black arrowhead) is placed just behind the fistulous site.

B: Whole image of the cavernous sinus is illustrated by microcatheter angiography.

C: HyperGlide (4×10mm) is inflated in order to prevent the coil from projecting into internal carotid artery.

D: A Galaxy coil (3.5mm×7.5cm, white arrow) is placed in the fistulous site.

Fig.5 Final angiograms

A: and B: Anteroposterior view(A) and lateral view(B) of right carotid angiogram in early arterial phase shows complete disappearance of the fistula.

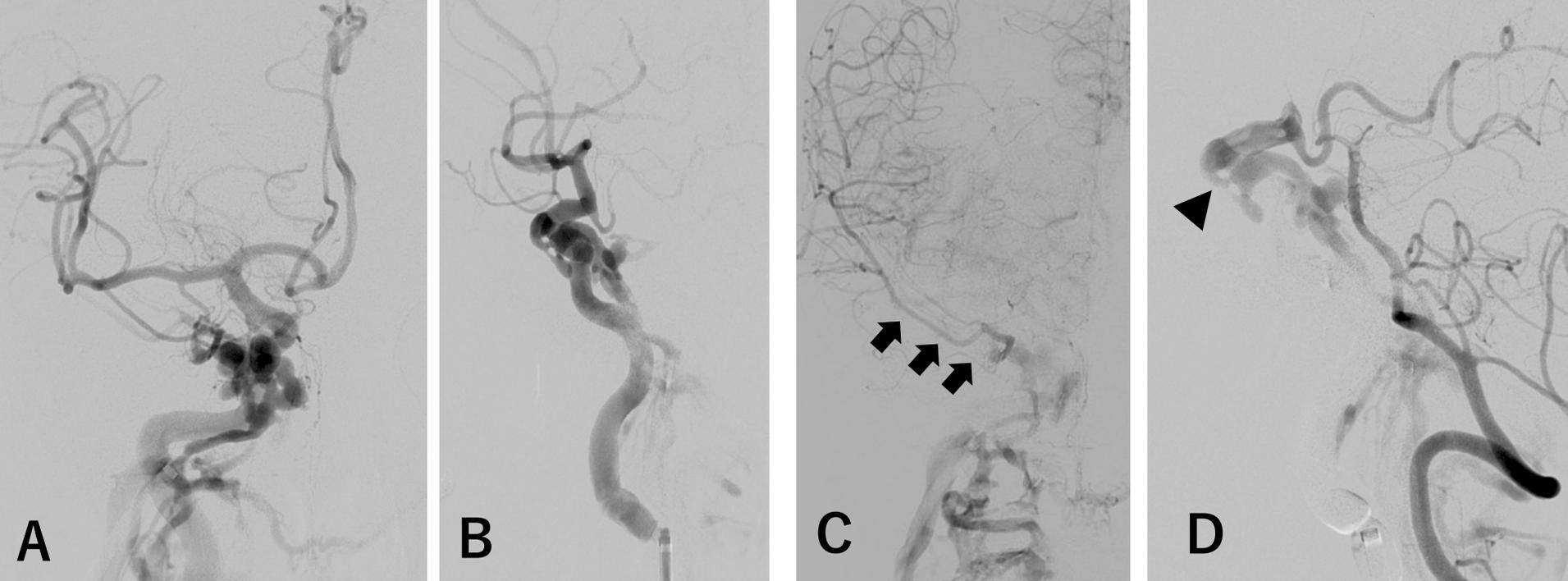


Fig.1

Fig.2



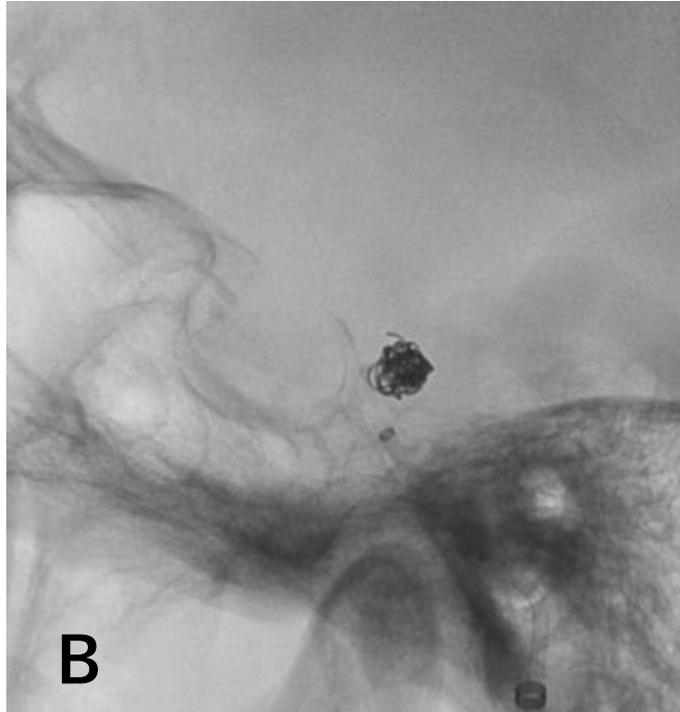
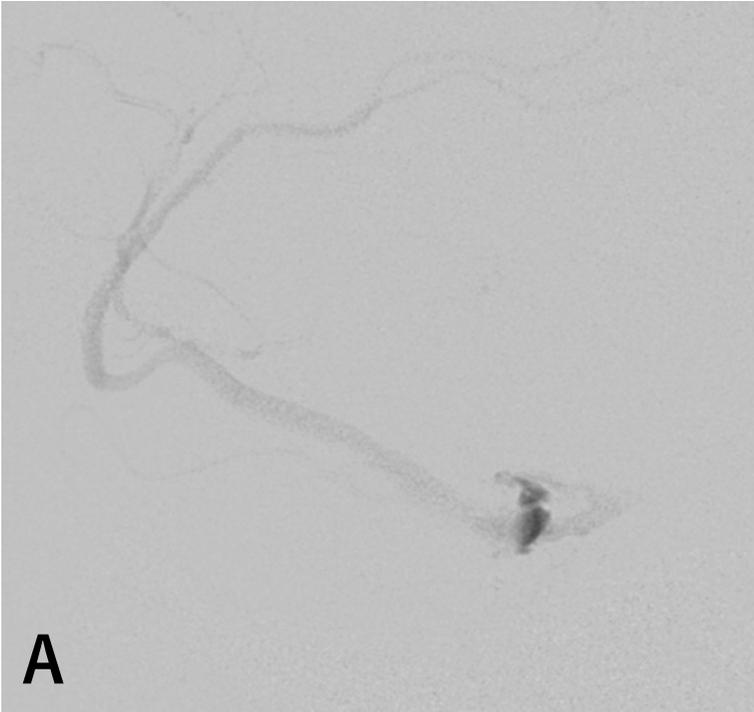


Fig.3

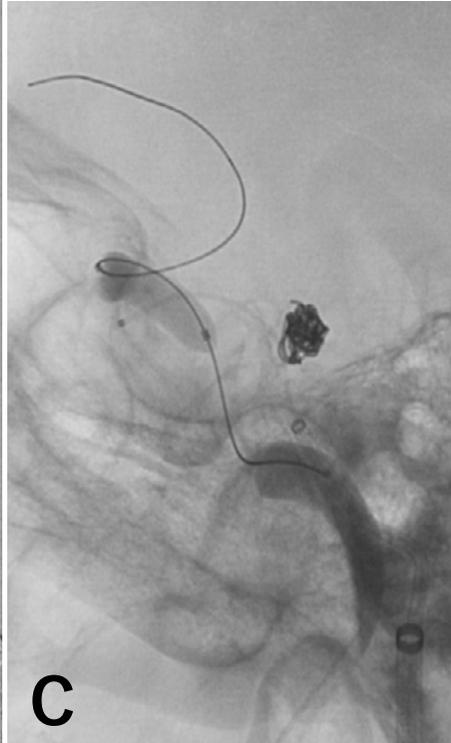
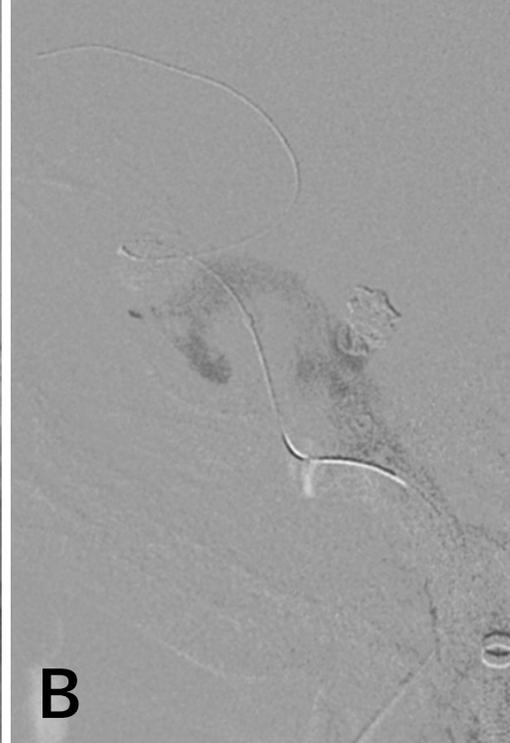
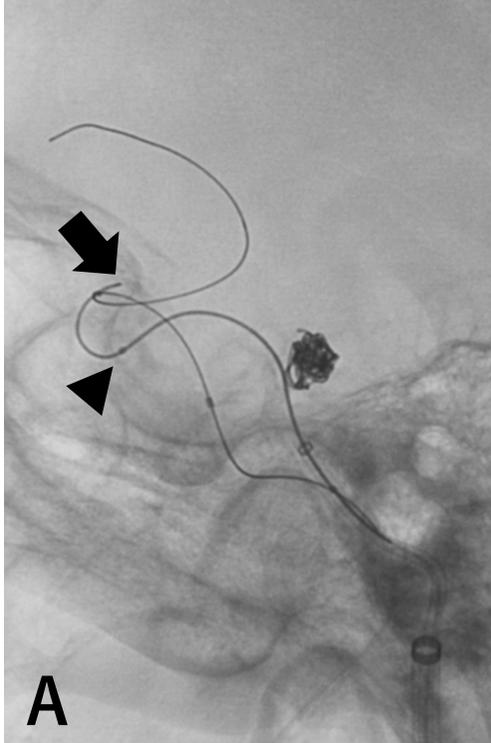


Fig.4

Fig.4Eを削除しました

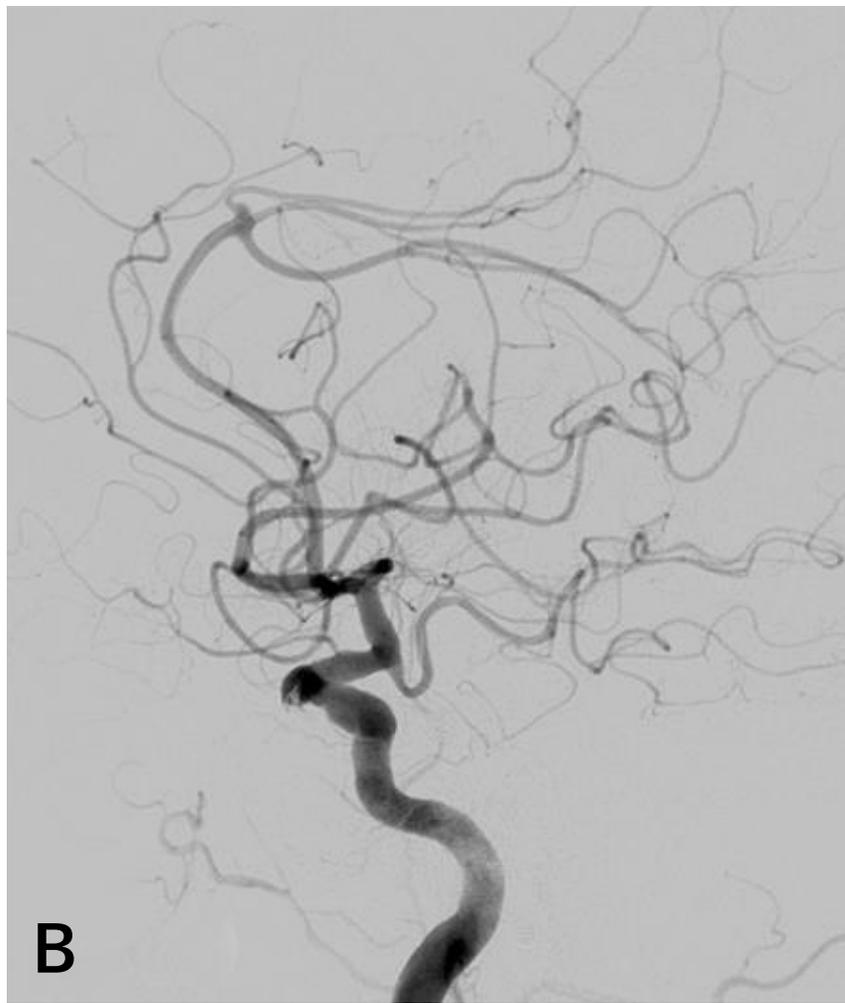
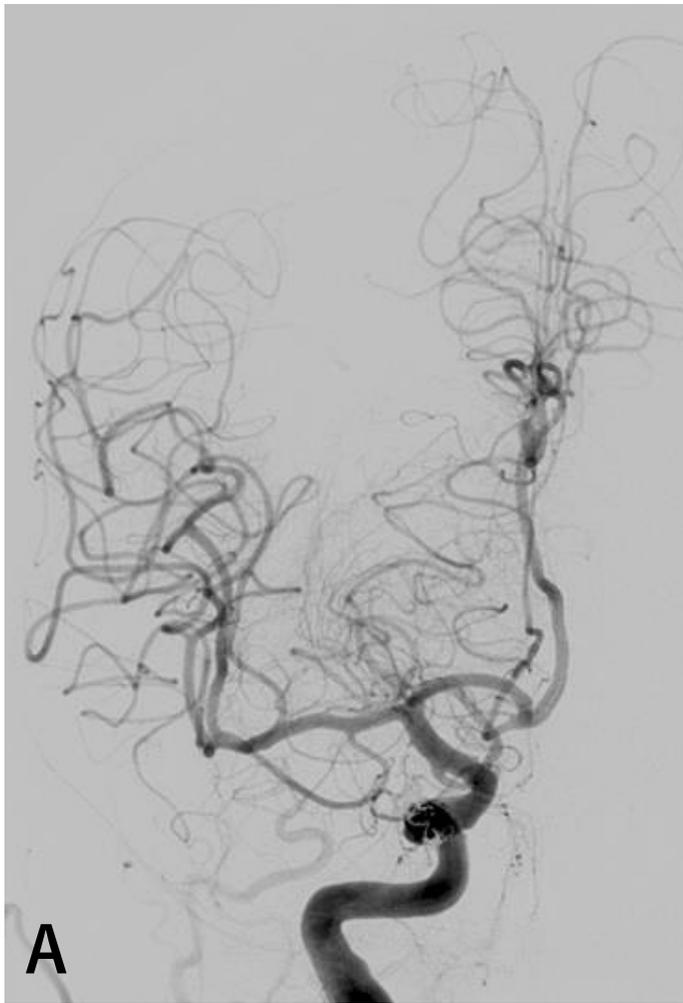


Fig.5