

放射線照射が著効をみた特発性
頸動脈・海綿静脈洞瘻の1例

佐藤 透 山本 祐司 浅利 正二

NEUROLOGICAL SURGERY

(国内文献略称：脳外)

第11巻 第12号 別刷

1983年12月10日 発行

医学書院

症 例

放射線照射が著効をみた特発性
頸動脈・海綿静脈洞瘻の1例*

佐藤 透** 山本 祐司 浅利 正二

Key words: Carotid-cavernous sinus fistula, Irradiation, Internal carotid artery, Cerebral angiography

I. はじめに

いわゆる特発性頸動脈・海綿静脈洞瘻 (spontaneous carotid-cavernous sinus fistula, 以下特発性 CCF と略す) は中・高齢者に発生し, 血管写上 dural fistula を呈することが多く, direct fistula を呈する外傷性 CCF に比べ短絡血液量は少なく, 症状も比較的軽度である. しかしながら, その治療方針, 手術術式に関してはいまだ決定的なものはなく, ことに血管写上, 流入動脈に内頸動脈枝が関与する症例は治療上, 最も問題となってくる¹⁰⁾.

最近われわれは meningohypophyseal trunk を流入動脈とした特発性 CCF が放射線照射により完全に消失した1例を経験したので, 自験例を呈示し, 若干の考察を加えて報告する.

II. 症 例

患 者: 65 歳 男

主 訴: 眼球突出, 複視および頭蓋内雑音

家族歴: 妹が高血圧症, 弟が54歳時脳卒中にて死亡.

既往歴: 肺結核症 (25歳), 高血圧症 (64歳)

現病歴: 1982年5月12日頃, 左眼球結膜の充血に気づいたが放置した. その後, 結膜の充血・浮腫および眼瞼の腫脹が出現し, 眼球突出, 複視を来した. 5月16日夜, 横になった直後から心拍と一致した頭蓋内雑音を自覚した. これらの症状は徐々に増悪したため, 5月21日, 当院眼科を受診, 紹介され, 5月25日当科へ入院した.

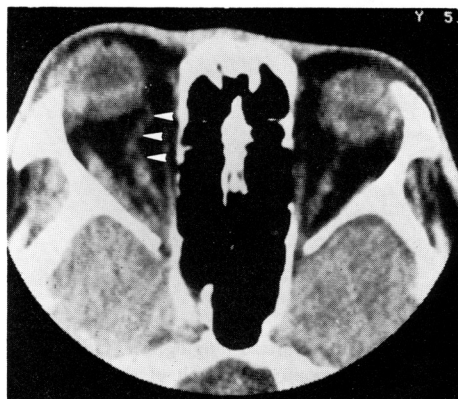


Fig. 1 Computed tomogram showing left exophthalmos and distended superior ophthalmic vein (arrowheads)

入院時所見: 左眼は眼球結膜の静脈怒張, 浮腫, 眼瞼腫脹がみられ, 閉眼は不可能で, 眼球突出 (右 16 mm, 左 21 mm) と眼圧の左右差 (右眼圧 15 mmHg, 左眼圧 18 mmHg) が認められ, 視力は Vd=1.0, Vs=0.9 で, 外転神経麻痺が認められた. 瞳孔不同はみられず, 対光反射は迅速で, 視野, 眼底には特に異常は認められなかった. 左眼窩後部痛および眼窩深部の心拍と一致した頭蓋内雑音を訴えたが, 雑音は他覚的には聴取しえなかった.

CT スキャン (Fig. 1) では, 左眼球突出および怒張した上眼窩静脈が認められた.

脳血管写所見: 5月28日施行された左頸動脈写 (Fig. 2)

* Spontaneous Carotid-Cavernous Sinus Fistula Disappeared following Cobalt 60 Irradiation: Case report (1982.11. 8 受稿)

** 松山市民病院脳神経外科, Toru SATOH, YUJI YAMAMOTO and Syoji ASARI, Department of Neurological Surgery, Matsuyama Shimin Hospital

[連絡先] 佐藤 透=松山市民病院脳神経外科 (☎790 松山市大手町 2-6-5)

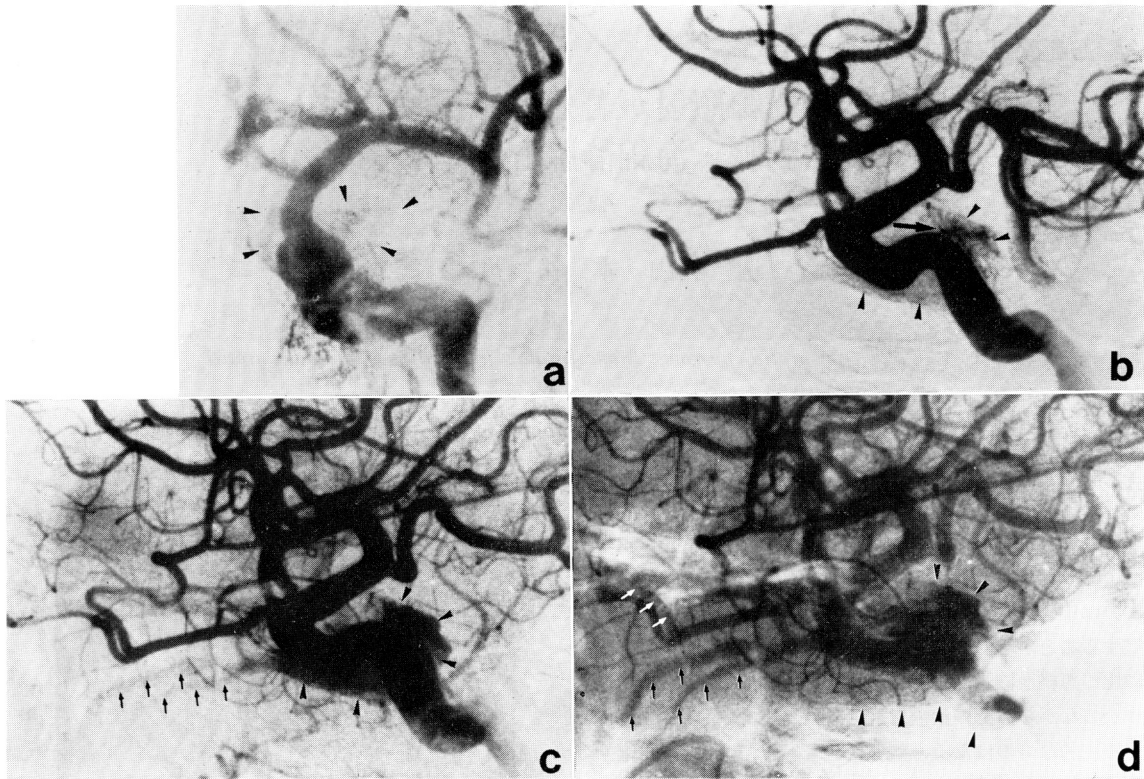


Fig. 2 Left carotid angiograms on May 28, 1982. **a)** Antero-posterior view. **b)-d)** Lateral view. Meningohypophyseal trunk of the left internal carotid artery (arrow) communicating with the superior and inferior ophthalmic veins (arrows) via the cavernous sinus (arrowheads) (dural internal carotid-cavernous sinus fistula).

では、meningohypophyseal trunk を流入動脈とする dural internal CCF が造影され、上・下眼窩静脈および脳底静脈叢に流出されていた。CCF の短絡血液量は少なく、脳動脈の造影は良好であった。

入院後経過：CCF の自然消失を期待して安静、臥床とし、止血剤、血管補強剤の内服および Matas test を反復しつつ保存的に経過を観察した。眼症状、眼窩後部痛、頭蓋内雑音は増悪・軽減を繰り返すも次第に悪化した。7月5日には眼球突出の増大（右18mm、左24mm）、視力低下（ $V_d=0.9$ 、 $V_s=0.5$ ）および眼底網膜静脈の拡張が認められた。そこで、7月14日より瘻部を中心に ^{60}Co 照射を開始した。照射開始翌日、頭蓋内雑音は突然消失し、1,500 rad 照射時には結膜充血・浮腫、眼瞼腫脹は軽減し、閉眼可能となり、2,900 rad 照射時には、軽度の結膜充血をみるも、眼症状は著明に改善し、眼窩後部痛は消失した。8月10日、総線量4,100 rad 照射終了後では、外転神経麻痺を残すも、その他の眼症状は完全に寛解し、視力も回復（ $V_d=0.9$ 、 $V_s=0.9$ ）した。

8月20日、脳血管写を再検したところ、CCF は完全に消失していた（Fig. 3）。

8月30日退院し、外来にて follow-up 中であるが、外転神経麻痺を残す以外、再発を疑わせる症状の出現はみえていない。

III. 考 按

特発性 CCF は中・高年の女性に発生し、非拍動性眼球突出、結膜の充血・浮腫および心拍に一致した自覚的頭蓋内雑音という特徴的的症状を呈し、しばしば頭痛、眼窩後部痛、外眼筋麻痺（特に外転神経麻痺）および複視、稀に視力低下などを伴ってくる^{8,11}。本症の成因は、海綿静脈洞壁の硬膜動静脈奇形の破裂¹²、海綿静脈洞内の菲薄動脈壁の破綻あるいは先天性小動静脈回路（Sucquet's duct）の opening^{9,17} による瘻形成と考えられ、糖尿病、高血圧、動脈硬化などの血管疾患、妊娠、出産・排便時のりきみ、あるいは外傷などが誘因とされている⁹。稀に内頸動脈海綿静脈洞部に発生した動脈瘤の

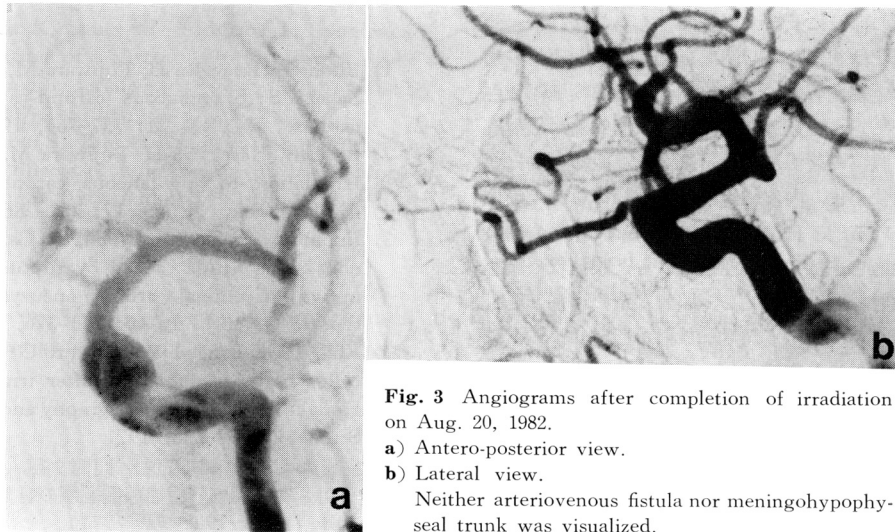


Fig. 3 Angiograms after completion of irradiation on Aug. 20, 1982.
a) Antero-posterior view.
b) Lateral view.
 Neither arteriovenous fistula nor meningo-hypophyseal trunk was visualized.

破裂や、その部の動脈壁断裂による瘻形成も知られている³⁾。

これら特発性 CCF は脳血管写上、流入動脈が内頸動脈枝 (meningohypophyseal trunk, 眼動脈の recurrent meningeal branch など) からなる dural internal CCF, 外頸動脈枝 (internal maxillary artery, middle meningeal artery, ascending pharyngeal artery など) からなる dural external CCF, あるいは内頸, 外頸動脈枝の両者からなる mixed dural internal and external CCF などの dural CCF を呈することがほとんどであり、外傷性 CCF でみられることが多い内頸動脈の海绵静脈洞部が直接海绵静脈洞に短絡する direct CCF を呈することは稀である^{2,8,11,13)}。また、流出静脈は単数あるいは複数で、上眼窩静脈, 下錐体静脈洞, 蝶形頭頂静脈洞, 脳底静脈叢あるいは下眼窩静脈が関与することが多い^{2,8)}。

さて、特発性 CCF は外傷性 CCF のように進行性のものは少なく、むしろ血管写後や何らかの契機で自然治癒することが多い^{5,8-11,16,17)}。これらは、症状出現の早い例、単一流入動脈で脳表静脈の関与しない例で比較的早期に生じやすいといわれ、いったん症状が消失すれば再発を繰り返すことはほとんどみられない¹⁰⁾。自然治癒機転の詳細は不明であるが、dural CCF は一般に low-flow, low-pressure であり⁸⁾、また海绵静脈洞部の血管動態上の特殊性から^{14,17)}、CCF 部では体位、呼吸、血圧変動、カテーテル留置などにより容易に血流方向が変化し血流停滞を来しやすい⁹⁾。また、本症では組織学的に海绵静脈洞隔壁内血管内腔の不規則性が認められ、血栓形成を来しやすいことが指摘されている⁸⁾。さら

に、本症で網膜静脈血栓症を合併した症例では高率に自然消失がみられ⁹⁾、これらは海绵静脈洞部での血栓形成と、それによる瘻孔閉塞との関連性を示唆するものとして興味を持たれている。

これまで CCF の治療については、endoarterial approach, venous approach, direct surgical approach など種々の方法が、主として外傷性 CCF に対して試みられてきたが⁷⁾、特発性 CCF の治療に関してはその報告は少ない^{10,16)}。特発性 CCF のうち外頸動脈枝のみを流入動脈とする症例では、外頸動脈の結紮や embolization で治癒せしめることが可能であるが⁶⁾、流入動脈に内頸動脈枝が関与する症例に対しては確実な手術方法が少なく¹⁶⁾、臨床症状が比較的軽度で、脳血管写上、瘻が小さく短絡血液量のわずかな症例では、自然治癒を期待して保存的に経過観察が行われてきた¹⁰⁾。しかしながら、眼症状が悪化し、ことに外眼筋麻痺や視力低下が進行する症例に対しては何らかの処置が必要になってくる。

自験例は、脳血管写上 meningohypophyseal trunk を流入動脈とする dural internal CCF を呈し、短絡血液量もわずかであったため、まずは自然治癒を期待し安静臥床にて保存的に経過観察を行った。しかしながら、徐々に症状は進行し、患者の苦痛が増大し、また視力も低下してきたため、発症約2カ月後から瘻部を中心に⁶⁰Co 照射を試みた。照射開始翌日に頭蓋内雑音は完全に消失し、照射線量の増加に伴い、眼症状は徐々に改善に向かい、総線量 4,100 rad 照射終了後には、外転神経麻痺を残すも、他の症状はほぼ完全に寛解し、脳血管写再検にて CCF の完全な消失が確認された。

放射線照射の血管に及ぼす影響は古くから知られ、その病理学的変化は狭窄ないし閉塞を伴った動脈硬化の進行、動脈炎、毛細血管ないし細静脈の血管内膜肥厚とされている^{4,12,18)}。また最近では、海綿状血管腫に放射線照射を行い、腫瘍の著明な縮小を来とし、組織学的に血栓化、血管の狭小化、内皮細胞の脱落が認められた症例が報告されている¹⁵⁾。自験例における CCF の消失は、偶然に自然治癒を来した可能性よりも、眼症状の増悪した時点で放射線照射を開始し、照射線量の増加とともに症状の改善をみている点から、放射線照射による血管変化、もしくはこれを契機とした血栓形成が瘻の閉塞に重要な役割を果たしたものである。

CCF に対する放射線照射の試みは、先に Bitoh ら^{1,2)}が、direct fistula と dural internal CCF を合併した 72 歳女性例と mixed dural internal and external CCF を呈した 62 歳女性例において各々 3,200 rad, 3,024 rad の ⁶⁰Co 照射を行い CCF の消失を認めたと報告している。放射線照射による遅発性血管障害の報告も散見される¹²⁾が、脳血管写上 dural CCF を呈し、高齢者で poor risk の症例、流入動脈に内頸動脈枝の関与する場合、あるいは複数の流入動脈を有する場合で外科的治療の困難な症例、症状の改善がみられず患者の苦痛が増大する症例においては放射線照射は有効な治療手段の一つであると思われた。ことに緑内障などによる視力低下や外眼筋麻痺を来す症例では、非可逆的障害を防止し CCF における機能予後を考える上で、自然消失を期待し保存的に経過観察を行うよりも、むしろ早期に積極的に放射線照射を試みてみてもいいのではないかとさえ考えられた。

IV. まとめ

meningohypophyseal trunk を流入動脈とした特発性 CCF が ⁶⁰Co 照射 (総線量 4,100 rad) により完全に消失した 1 例を報告した。

脳血管写上 dural CCF を呈し、外科的治療の困難な症例、症状が進行性で、ことに視力低下や外眼筋麻痺を来してくる症例においては、放射線照射は有効な治療手段と思われた。

最後に、症例の治療に御協力をいただいた当院眼科 樺沢みさと先生、内科宮崎文宣先生に深謝致します。

本論文の要旨は、第 22 回愛媛脳神経外科懇話会 (1982 年、周桑) において発表した。

文 献

- 1) Bitoh S, Hasegawa H, Fujiwara M, Nakata M, Sakaki S: Spontaneous carotid-cavernous fistulas. 神経外科 21: 757-764, 1981
- 2) Bitoh S, Hasegawa H, Fujiwara M, Nakao K: Irradiation to spontaneous carotid-cavernous fistulas. Surg Neurol 17: 282-286, 1982
- 3) Enomoto T, Sato A, Maki Y: Carotid-cavernous sinus fistula caused by rupture of a primitive trigeminal artery aneurysm: Case report. J Neurosurg 46: 373-376, 1977
- 4) Kagan AR, Bruce DW, DiChiro G: Fatal foam cell arteritis of the brain after irradiation for Hodgkin's disease: Angiography and pathology. Stroke 2: 232-238, 1971
- 5) 向後雄大, 古和田正悦, 門間文行, 菊地顕次, 玉川芳春: 頸動脈海綿静脈洞瘻の自然治癒例. 脳外 7: 187-190, 1979
- 6) Mahalley MS Jr, Boone SC: External carotid-cavernous fistula treated by arterial embolization: Case report. J Neurosurg 40: 110-114, 1974
- 7) 森 和夫: 内頸動脈-海綿静脈洞瘻 (CCF) の直達手術. 脳外 10: 245-248, 1982
- 8) Newton TH, Hoyt WF: Dural arteriovenous shunts in the region of the cavernous sinus. Neuroradiology 1: 71-81, 1970
- 9) 西村みえ子, 井上泰彦, 百枝 栄, 沼口雄治: 網膜中心静脈血栓症をきたした頸動脈海綿静脈洞瘻の 4 例—自然治癒との関係について. 臨眼 30: 1301-1306, 1976
- 10) 貫井英明, 宮城 修, 玉田潤平, 金子の実, 佐々木秀夫, 小松俊一, 三塚 繁, 川淵純一: 特発性頸動脈海綿静脈洞瘻症例における長期追跡調査結果とそれに基づく治療方針. 神経外科 (Suppl) 21: 141, 1981
- 11) 太田富雄, 梶川 博, 田辺治之, 児玉和典, 唐沢 淳, 半田 肇, 西村周郎, 牧田泰正: 特発性頸動脈・海綿静脈洞瘻の病因—臨床病理学的考察. 神経外科 16 (part II): 535-544, 1976
- 12) Painter MJ, Chutorian AM, Hilal SK: Cerebrovasculopathy following irradiation in childhood. Neurology 25: 189-194, 1975
- 13) Peeters FM, Kröger R: Dural and direct cavernous sinus fistulas. AJR 132: 599-606, 1979
- 14) Servo S: Visualization of the superior ophthalmic vein on carotid angiography. Neuroradiology 23: 141-146, 1982
- 15) 柴田尚武, 栗原正紀, 森 和夫, 天本祐平: 中頭蓋窩海綿状血管腫に対する術前照射と CT. 脳外 9: 211-215, 1981
- 16) 米田俊一, 松田昌之, 後藤 弘, 半田 肇: 特発性内頸動脈海綿静脈洞瘻の治療法. 神経外科 19: 141-147, 1979

- 17) Voigt K, Sauer M, Dichgans J: Spontaneous occlusion of a bilateral carotid-cavernous fistula studied by serial angiography. *Neuroradiology* **2**: 207-211, 1971
- 18) Warren S: Effects of radiation on normal tissues. VI. Effects of radiation on the cardiovascular system. *Arch Pathol* **34**: 1070-1079, 1952

Abstract

Spontaneous Carotid-Cavernous Sinus Fistula
Disappeared following Cobalt 60 Irradiation:
Case report

by

Toru SATOH, Yuji YAMAMOTO and Syoji ASARI

from

Department of Neurological Surgery,
Matsuyama Shimin Hospital, Ehime, Japan

The authors reported a case of spontaneous carotid-cavernous sinus fistula fed by meningohypophyseal trunk of the internal carotid artery, that completely disappeared following cobalt 60 irradiation to the region of fistula (27 days; total dose, 4,100 rad).

A 65-year-old man was admitted to our hospital on May 25, 1982, with a two-week history of progressive prominence of the left eye, diplopia on left lateral gaze, and continuous intracranial bruit. He first noted redness of the left eye without apparent cause such as head trauma. On admission, slight non-

pulsative exophthalmos, periorbital edema, chemosis, and venous congestion of the conjunctiva of the left eye were noted. The pupils were reactive and equal in size, and the left abducent nerve palsy was observed. Fundoscopic examination disclosed to be normal. No bruit was heard over the left orbital region. Left carotid angiography on May 28 demonstrated dural internal carotid-cavernous sinus fistula fed by meningohypophyseal trunk, and drained into superior and inferior ophthalmic veins and basilar venous plexus. Though the patient was treated only conservatively, symptoms became worse to decrease visual acuity. On July 14, we started cobalt 60 irradiation to the region of fistula (27 days; total dose 4,100 rad). Symptoms gradually improved about halfway through irradiation. After completion of irradiation, almost complete improvement of visual and ocular symptoms was observed except the left abducent nerve palsy. Repeated angiography on Aug. 20 revealed complete disappearance of fistula. Three months after treatment, no recurrence of symptoms was observed and the abducent nerve palsy persisted without improvement.

In the management of spontaneous carotid-cavernous sinus fistula, irradiation was considered one of the effective therapeutic methods in case of low-flow, low-pressure, dural fistulas, surgically inaccessible ones, or poor risk patients. Considering functional prognosis of carotid-cavernous sinus fistula, in place of conservative observation, early start of irradiation may be better in case of aggravating visual and ocular symptoms.

(Received: Nov. 8, 1982)