症 例 報 告

Traumatic trigeminal-cavernous fistula の 1 例

百 次 仁 島 袋 洋 豊見山 直 樹

Traumatic Trigeminal-cavernous Fistula : A Case Report and Review

by

Jin Momoji, M.D., Hiroshi Shimabukuro, M.D., and Naoki Tomiyama, M.D.

from

Department of Neurosurgery, Naha City Hospital

We reported a rare case of posttraumatic trigeminal-cavernous fistula. A 17-year-old man was involved a motorcycle accident and he was admitted in a comatose state to our emergency room, and then recieved a craniotomy and removal of acute epidural hematoma at the posterior fossa. After the operation, his condition but improved he had left facial palsy and a hearing disturbance due to a skull base fracture. As he complained of a tinnitus twenty days after the operation, he underwent a magnetic resonans angiogram (MRA), which suggested a carotid-cavernous fistula. A cerebral angiogram disclosed a persistent primitive trigeminal artery (PPTA) and fistula from the PPTA to the cavernous sinus (trigeminal-cavernous fistula). The cause of the fistula was thought to be a skull base fracture around the foramen lacerum. This lesion was successfully treated by coil embolization *via* transarterial route. We reviewed the reports of 8 traumatic TCF and 7 spontaneous TCF cases.

(Received October 28, 2005 ; accepted December 14, 2005)

Key words : traumatic trigeminal-cavernous fistula, carotid-cavernous fistula, persistent primitive trigeminal artery, transarterial coil embolization

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 15 : 420-426, 2006

はじめに

重症頭部外傷に内頸動脈海綿静脈洞瘻 (carotid-cavernous fistula ; CCF) を合併した報告は少なくないが, persistent primitive trigeminal aretery (PPTA) を介する瘻孔 (trigeminal-cavernous fistula ; TCF) が認められた報告は数少ない^{4) 6) 7) 9) 10) 15) 18)}. 本例は, 交通外傷による後頭蓋窩急性硬膜外血腫の重症例であったが, 血腫除去術後状態が安定し, 耳鳴の訴えにて施行した MRA で CCF が疑われた. 内頸動脈撮影 (CAG) および椎骨動脈撮影 (VAG) にて, PPTA を介して海綿静脈洞 (CS) との瘻孔が認められ, 経動脈的な coil 塞栓術にて治療が得られた. TCF の報告例を渉猟し, 検討したので報告する.

症 例

患 者 : 17 歳, 男性

現病歴 : オートバイ事故にて救急搬送された. 来院時 JCS 200, 全身痙攣, 瞳孔散大あり. 鼻腔口腔出血多量による呼吸困難のため気管内挿管施行. CT にて後頭蓋窩の急性硬膜外血腫, 多発性の頭蓋顔面骨骨折が認められた. 厚さ約 2 cm の硬膜外血腫が左後頭蓋窩にみられたが, 水頭症, 脳幹圧迫は無かったため経過観察とした. しかし, 4 時間後の CT で, 血腫は厚さ約 3 cm, 両側性となりテント上にまで進展したため緊急開頭血腫除去術を施行した (Fig. 1A, B). 術後, 全身状態も安定し意識も清明になったが, 左顔面神経麻痺, 左聴覚障害が残った.

那覇市立病院脳神経外科 / 〒902-8511 那覇市古島 2-31-1 [連絡先: 百次 仁]

Address reprint requests to: Jin Momoji, M.D., Department of Neurosurgery, Naha City Hospital, 2-31-1 Furujima, Naha-shi, Okinawa 902-8511, Japan

A/B
C/D

Fig. 1 A: CT obtained 4 hours after admission shows the enlarged hematoma.
B: CT after hematoma removal revealed a disappearance of the hematoma on the posterior fossa and appearance of another small epidural hematoma on the right frontal base.
C, D: Bone window CT revealed skull base fracture around the foramen lacerum (arrows).

A/B/C
D/E

Fig. 2 A: Magnetic resonance angiogram (MRA) obtained one month after admission suggested the CCF.
B, C: Left internal carotid arteriogram (ICAG) revealed CCF drained into the left superior (SPS) and inferior petrosal sinuses (IPS). A PPTA (arrow) could be seen.
D, E: Right vertebral arteriogram (VAG) revealed a PPTA (arrow) and a trigeminal-cavernous fistula (TCF*) fed by the PPTA.

た。頭蓋底、特に破裂孔周囲に骨折があり (Fig. 1C, D), 耳鳴も訴えたため、施行した MRI および MRA で左 CCF が疑われ (Fig. 2A), CAG にて左内頸動脈から CCF, さらに VAG にて上小脳動脈と前下小脳動脈の間の脳底

動脈本幹から分岐し左前外側に走る細い PPTA と CS が描出された (Fig. 2B~E)。この時点では瘻孔による症状は耳鳴以外認められなかったが、症状の進行を防ぐため血管内手術を予定した。

A/B
C/D

Fig. 3 A, B : Injection from a microcatheter through the PPTA in the cavernous sinus revealed the fistula.

C : ICAG after the last coil deposition showed a slightly residual fistula.

D : VAG after coil embolization revealed no fistula.

Fig. 4 A, B : Left ICAG 10 days after embolization revealed complete occlusion of the fistula.

C, D : Right VAG 10 days after embolization showed the disappearance of the PPTA and fistula.

Fig. 5 MRA obtained one year after embolization revealed the disappearance of the TCF

血管内手術所見：局所麻酔下，左大腿動脈に 4Fr. sheath を穿刺し留置した，右大腿動脈に 6Fr. sheath を穿刺し，6Fr. guiding catheter を左内頸動脈に挿入留置した，Microcatheter を PPTA の分岐部から瘻孔へ挿入し，sinography を行った (Fig. 3A, B)．CS の後外側，上錐体静脈洞 (SPS) 近傍に瘻孔があることを確認し同部を塞栓した．First coil は，Fibered Guglielmi detachable coil (GDC, Boston Scientifics) 18,2 mm×3 mm, 30 mm を挿入した時点で SPS は写らなくなった (Fig. 3D)．さらに同型をもう 1 本挿入し，VAG を施行すると CS は描出さ

A/B Fig. 6 A: Sagittal view B: Axial view

Schema of the PPTA and surrounding structures. The fistulous point is thought to be nearby the origin of the PPTA from the IC, which is also the point where the SPS joins the CS.

BA; basilar artery, V; fifth cranial nerve, VI; sixth cranial nerve, ACP; anterior clinoid process, SOV; superior ophthalmic vein, SCA; superior cerebellar artery

れなくなった。この後の coil の挿入は、PPTA が細くて困難であったため、GDC ultrasoft 2 mm を内頸動脈の PPTA 分岐部まで可能な限り挿入し、計 8 本 16 cm を留置した。最終の CAG で CCF はわずかに残存したが、血栓化を期待し終了した (Fig. 3C)。終了時には、耳鳴は消失した。

血管内手術 1 週間後、血管撮影にて完全閉塞を確認 (Fig. 4) し、退院となった。脳底動脈から分岐する PPTA も描出されなくなった。その後、外来フォローにて左顔面麻痺、聴覚障害は改善・消失した。1 年後の MRA にて再発は認めていない (Fig. 5)。

考 察

Primitive trigeminal artery は、胎芽期 3 mm にて後に脳底動脈になる longitudinal neural artery と内頸動脈を連絡し、その後、後交通動脈が発達するにつれ縮小し、正常では 14 mm 期までには消失する。PPTA として残存するのは、0.1~0.2% 前後とされる⁸⁾¹²⁾。Lasjaunias ら¹⁴⁾は、incomplete trigeminal persistence with a patent basilar artery, partial trigeminal persistence または trigeminal remnants と表しているが、すなわち本例は、adult type の PPTA が存在し、これが三叉神経節外側へ達した後、中頭蓋底を貫いたところで頭蓋底骨折により CS と瘻孔を形成したと考えられる (Fig. 6)。

文献的には、本例を含めて外傷性 TCF の報告は 8 例⁴⁾⁶⁾⁷⁾⁹⁾¹⁰⁾¹⁵⁾¹⁸⁾ (Table 1) あり、特発性 TCF の報告は 7

例¹⁾²⁾³⁾⁸⁾¹⁰⁾¹³⁾¹⁷⁾ (Table 2) あった。前者では男性が多く、動脈瘤の形成が 2 例、後者は 7 例中 5 例が女性で、5 例に血管撮影上明らかな動脈瘤が認められた。つまり特発性は、海綿静脈洞部の動脈瘤の破裂により生じている可能性がきわめて高いと思われる。また、外傷性の場合、動脈瘤がみられることは少ないが、あった場合は仮性動脈瘤であり、balloon や coil で治療を行う場合には破裂の危険性を念頭に置かねばならない。症状は、外傷例は意識障害の高度な症例もあるが、ほとんどに共通するのは、血管雑音、眼球突出、結膜充血、そして外転神経麻痺であった。眼症状は静脈灌流路によるもので、外転神経麻痺は PPTA に接して走る外転神経への圧迫症状として理解できる。本例の顔面神経、聴覚障害は錐体骨骨折によるものであり、TCF による症状は耳鳴のみであった。治療は、1970 年代は Selverstone clamp による IC ligation、1980 年代になると balloon を用いた血管内治療、1998 年からは離脱式 coil による治療が報告されており、治療法の変遷が伺われる。

通常、CCF の緊急治療は、進行性の視力障害、皮質または深部静脈への流出路の発達がある場合に必要とされる²⁾¹¹⁾。しかし、当初軽微な症状で瘻孔も小さい状態のものが進行性に増大・増悪し、治療を要することもある¹⁶⁾¹⁸⁾。本例の場合は、進行して治療困難になってから行うより、早期に対処すべきと考えて治療を行った。幸いにも内頸動脈側から細い PPTA に挿入可能で、CS から PPTA 分岐部まで一期的に塞栓可能であった。この場合、椎骨動脈および脳底動脈が低形成で PPTA が脳底動

Table 1 Reported cases of traumatic trigeminal-cavernous fistula

Case No.	Author	Age/Sex	Symptoms	Treatment	AN	Outcome
1	Flandroy (1987)	35/?	unconscious otorrhagia, pulsatile exophthalmos, ophthalmoplegia, bruit	IVR (balloon)	(+)	GR
2	Debrun (1988)	30/M	proptosis, chemosis, bruit	IVR (balloon)	(-)	GR
3	Guglielmi (1990)	20/M	exophthalmos, chemosis, 6th CN palsy, bruit	Refused	(+)	
4	Cheng (1990)	42/M	proptosis, diplopia, bruit, blurred vision, EOM disturbance	Direct	(-)	GR
5	Mckenzie (1996)	36/M	proptosis, chemosis, bruit, 6th CN palsy	IVR (balloon)	(-)	MD
6	Cook (2000)	83/F	3, 4, 5, 6th CN palsy, proptosis, chemosis	IVR (balloon)	(-)	GR
7	Tokunaga (2004)	61/F	disturbed consciousness, hemiparesis, aphasia, bruit/proptosis, diplopia	IVR (TVE, coil)	(-)	MD
8	Auther (2005)	17/M	tinnitus, 7, 8th CN palsy	IVR (TAE, coil)	(-)	GR

EOM; extraocular movement, GR; good recovery, MD; Moderately disabled, CN; cranial nerve, IVR; interventional radiology

Table 2 Reported cases of spontaneous trigemino-cavernous fistula

Case No.	Author	Age/Sex	Symptoms	Tx.	AN	Outcome
1	Enomoto (1977)	42/F	ophthalmic pain, proptosis/miosis, 6th CN palsy, hypalgesia of the V1 area, visual acuity loss	Direct	(+)	MD
2	Charlin (1982)	53/F	exophthalmos, bruit	IVR failed (balloon)	(+)	
3	Kerber (1983)	26/M	ophthalmic pain, proptosis, chemosis, blurred vision, 5, 6th CN palsy, bruit	IVR (balloon)	(+)	GR
4	Berger (1984)	51/F	bruit, proptosis, chemosis, 6th CN palsy	Direct (IVR failed)	(+)	MD
5	Guglielmi (1990)	57/M	chemosis, 6th CN palsy, eyelid swelling, tinnitus	IVR (balloon)	(+)	GR
6	Bernstein (1998)	53/F	bruit, 6th CN palsy	IVR (coil)	(-)	GR
7	Oka (2000)	58/F	chemosis, exophthalmos, bruit, 6th CN palsy	IVR (coil)	(-)	GR

V1; Trigeminal nerve 1st division

脈末梢および上小脳動脈の血流を担っている fetal type の時は、もし後交通動脈が低形成であれば、PPTA の閉塞により脳幹の著しい虚血を招くことがあり、きわめて危険となる⁷⁾¹⁵⁾。本例は、脳幹の血流は椎骨動脈より灌流される adult type で、PPTA の閉塞によって新たな症状の出現は無いと判断して閉塞に踏み切った。

治療法については、現在でも内頸動脈の laceration に伴う CCF では balloon が第一選択とされているが、balloon は扱いがやや困難で migration の危険性や laceration が小さいと挿入できず、骨片により破裂することなどもあり熟練を要するため、coil の使用が増えていると思われる。coil は扱いが balloon より容易であり、瘻孔が

小さい場合には経動脈的にCSへcoilを挿入してpoint embolizationを行うほうが時間と材料を節約できる。そうすれば、不完全閉塞に終わった場合でも、まだ経静脈的に到達する可能性を残すことができると思われる。さらに本例のようなCS内の分枝の損傷による場合は、coilを用いた分枝のtrappingが特に有用と思われる。本例では内頸動脈からPPTAにmicrocatheterを挿入することが可能で、CS内からPPTAとCSとの瘻孔部を塞栓した。2本のfibered coilをSPSからCSにかけて留置した時点でVAGではCSが認められなくなったが、CAGではまだ明瞭に描出されたのでPPTAの分岐部まで塞栓した。PPTAは細く、分岐部近傍ではカテーテルをPPTA内でも保持が困難だったため、柔らかいultrasoftの2mm径のcoilを選択することによって分岐部ぎりぎりまで挿入可能であった。Pushable coilにはfibered coilが幾種類もあるが、retrievable coilにも短い直線状のfibered coilがあれば、本例のような狭い部位での塞栓もさらに容易で確実なものになると思われた。

Connorら⁵⁾が述べるように、重症頭部外傷時には外傷性CCF、その他の血管障害の早期発見・早期治療が重要であり、本例はMRIおよびMRAで早期発見できたことにより治療が容易であったことを強調したい。MRIおよびMRAはfollow-upにもきわめて簡便で有用な検査と思われる。また、本例のごとく亜型または合併奇形の可能性もあるため、血管撮影時には内頸動脈撮影のみでなく可能な限り全血管を確認したうえで治療戦略を立てなければならないと思われた。

結 語

- 1) 重症頭部外傷後のTCFの1例を報告した。
- 2) 外傷性TCFの治療に経動脈的コイル塞栓術が有効であった。
- 3) 重症頭部外傷後の血管障害、脳損傷の発見には、MRIおよびMRAが有用であり、本例は早期発見によって最小限の手技で根治が得られた。

文 献

- 1) Berger MS, Hosobuchi Y: Cavernous sinus fistula caused by intracavernous rupture of a persistent primitive trigeminal artery: Case report. *J Neurosurg* **61**: 391-395, 1984.
- 2) Bernstein K, Teitelbaum GP, Herman B, Giannotta SL: Coil embolization of a trigeminal-cavernous fistula. *AJNR*

- Am J Neuroradiol* **19**: 1953-1954, 1998
- 3) Charlin JF, Clavier E, Thiebot J, Brasseur G, Langlois J: Cavernous fistula caused by rupture of an aneurysm of the trigeminal artery: Case report. *Rev Otoneuroophthalmol* **54**: 249-254, 1982.
- 4) Cheng WC, Wang AD: Carotid-cavernous sinus fistula associated with a primitive trigeminal artery. *Neurosurgery* **27**: 802-805, 1990.
- 5) Connor SE, Martin AJ, Deasy NP, Jeffree MA, Strong AJ: Traumatic basilar pseudoaneurysm with a basilar-cavernous arteriovenous fistula. *Neuroradiology* **43**: 249-253, 2001.
- 6) Cook BE Jr, Leavitt JA, Dolan JW, Nichols DA: Carotid cavernous fistula associated with persistent primitive trigeminal artery. *J Neuroophthalmol* **20**: 264-265, 2000.
- 7) Debrun GM, Davis KR, Nauta HJ, Heros RE, Ahn HS: Treatment of carotid cavernous fistula or cavernous aneurysms associated with a persistent trigeminal artery: Report of three cases. *AJNR Am J Neuroradiol* **9**: 749-755, 1988.
- 8) 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, 1997.
- 9) Flandroy P, Lacour P, Marsault C, Stevenaert A, Collognon J: The intravascular treatment of a cavernous fistula caused by rupture of a traumatic carotid trigeminal aneurysm. *Neuroradiology* **29**: 308-311, 1987.
- 10) Guglielmi G, Vinuela F, Dion J, Duckwiler G, Cantore G, Defini R: Persistent primitive trigeminal artery-cavernous sinus fistulas: Report of two cases. *Neurosurgery* **27**: 805-808, 1990.
- 11) Halbach VV, Hieshima GB, Higashida RT, Reicher M: Carotid cavernous fistulae: Indications for urgent treatment. *AJR Am J Roentgenol* **149**: 487-493, 1987.
- 12) Huber P (foreword by Krayenbühl H, Yaşargil G): *Cerebral angiography*. New York, Stuttgart, Georg Thieme Verlag, 1982, pp.58-59.
- 13) Kerber W, Manke W: Trigeminal artery to cavernous sinus fistula treated by balloon occlusion. Case report. *J Neurosurg* **58**: 611-613, 1983.
- 14) Lasjaunias P, Berenstein A: *Surgical neuroangiography*. Berlin, Springer-Verlag 1987, pp.345-348.
- 15) McKenzie JD, Dean BL, Flom RA: Trigeminal-cavernous fistula: Saltzman anatomy revisited. *AJNR Am J Neuroradiol* **17**: 280-282, 1996.
- 16) 百次 仁, 六川二郎, 山城勝美, 金城利彦, 崎原永辰, 原国 毅, 堀川恭偉: Direct CCFに対するプラチナ製マイクロコイルを用いた経動脈的塞栓術. *脳神経* **49**: 85-91, 1997.
- 17) Oka Y, Sadamoto K, Tagawa M, Kumon Y, Sakai S, Fujita M: Transvenous embolization of carotid-cavernous sinus fistula associated with a primitive trigeminal artery: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **40**: 61-64, 2000.
- 18) Tokunaga K, Sugiu K, Kameda M, Sakai K, Terasaka K, Higashi T, Date I: Persistent primitive trigeminal artery-cavernous sinus fistula with intracerebral hemorrhage: endovascular treatment using detachable coils in a transarterial double-catheter technique. *J Neurosurg* **101**: 697-699, 2004.

要 旨

Traumatic trigeminal-cavernous fistula の 1 例

百次 仁 島袋 洋 豊見山直樹

稀な外傷後の trigeminal-cavernous fistula (TCF) の 1 例を報告する。17 歳男性で、交通事故後、昏睡状態で搬送された。後頭蓋窩急性硬膜外血腫の重症例であったが、血腫除去術後状態が安定し、耳鳴の訴えにて手術施行より 20 日後に施行した MRA で内頸動脈海綿静脈洞瘻が疑われた。血管撮影にて persistent primitive trigeminal artery から海綿静脈洞への瘻孔が確認された。瘻孔の原因は、頭蓋底骨折によると考えられた。経動脈的なコイル塞栓術にて完治した。本例を含めて外傷性 8 例、特発性 7 例の TCF の報告例を渉猟し、検討したので報告する。

脳外誌 15 : 420-426, 2006

会 員 の 皆 様 へ

第 26 回日本脳神経外科コンgres 議事総会のお知らせ

第 26 回日本脳神経外科コンgres総会期間中、5 月 13 日(土)14 : 15 から 15 : 45 に議事総会を A 会場にて行います。

本年はコンgres運営委員 8 名の選挙(正会員による単記無記名投票)がありますので、正会員の先生は是非ご出席下さい。なお、ご欠席の場合はプログラム号の委任状にお書き添えの上、郵送して下さい。

日本脳神経外科コンgres事務局