症 例 報 告

海綿静脈洞炎に続発した 内頸動脈海綿静脈洞部細菌性動脈瘤の1例

久 田 均 高 良 英 一
笠 井 直 人 比 嘉 靖

A Bacterial Aneurysm of the Intracavernous Carotid Artery Secondary to Cavernous Sinusitis : A Case Report and a Review of the Literature

by

Hitoshi Kuda, M.D., Eiichi Takara, M.D., Naoto Kasai, M.D., and
Yasushi Higa, M.D.

from

Section of Neurosurgery, Okinawa Red Cross Hospital

The authors report a case of a 56-year-old man who was found to have a bacterial aneurysm in the cavernous portion of the internal carotid artery secondary to cavernous sinusitis. Serial angiography revealed that the aneurysm had enlarged and it was successfully treated by trapping with an STA-MCA anastomosis.

Bacterial aneurysms of the cavernous carotid artery are rare, and only 26 cases have been reported in the Japanese and English literature. Based on these reported cases, the characteristics of this disease are as follows : 1) it predominantly occurs in children (48.1%) and in males (63%) ; 2) the most common etiologic factors are an infection of the furuncles of the face, sinusitis, middle ear infections, and dental infections (57.7%) ; and, 3) meningitis is also a very common complication (70.4%). Serial angiography provides a method to check aneurysmal enlargement that usually occurs (55%), and the clinical outcome of treated cases is good (96.3%).

Based on our experiences and on what has been reported in the literature, if serial angiography shows aneurysmal enlargement, surgical treatment should be considered.

(Received September 16, 1994 ; accepted December 26, 1994)

Key words : bacterial aneurysm, intracavernous carotid artery

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 4 : 415-420, 1995

はじめに

内頸動脈海綿静脈洞部に発生する細菌性動脈瘤は比較的稀な疾患と考えられ、われわれが渉猟した日英の文献上26例を数えるにすぎない (Table 1)。最近、われわれは海綿静脈洞炎に続発したと考えられる細菌性動脈瘤の1例を経験したので、その病態・診断・治療および予後について、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症 例：56歳，男性

主 訴：発熱，嘔吐，右眼瞼下垂

既往歴：数年前より糖尿病があり，食事療法を行っていた。また以前より，右下顎大臼歯の歯肉炎の再発を繰り返していた。

現病歴：1992年3月下旬より右下顎大臼歯の歯肉炎があり，自力で排膿後，市販薬（詳細不明）を内服して

沖縄赤十字病院脳神経外科／〒900 那覇市古波蔵4-11-1〔連絡先：久田 均〕

Address reprint requests to : Hitoshi Kuda, M.D., Section of Neurosurgery, Okinawa Red Cross Hospital, 4-11-1 Kohagura, Naha-shi, Okinawa 900, Japan

Fig. 1 A : Plain CT-scan on admission
B, C : A plain (B) and an enhanced CT-scan (C) on the 10th day after hospital admission show a widening of both cavernous sinuses (B) and circular enhancement of the left cavernous sinus (C).

いた。4月1日より左前頭部痛が出現し、11日には発熱、嘔吐、右眼瞼下垂が出現して当科を受診。精査、治療の目的で入院となった。

入院時現症：体温 37.7°C、脈拍 64/分、心雑音は聴取されなかった。神経学的には、右動眼神経完全麻痺、左三叉神経第1枝領域の知覚過敏を認めた。

検査所見：白血球 20,100 (Stab 25%, Seg 51%, Ly 9%, Mon 13), CRP 29.9 mg/dL、空腹時血糖 211 mg/dL、血液の細菌培養は陰性であった。

髄液検査：初圧 27 cmH₂O、細胞数 522/3 (N : L = 386 : 136)、糖 95 mg/dL、蛋白 81 mg/dL、Cl 112 mEq/L、細菌培養は陰性であった。

入院後経過：入院時頭部単純 CT では明らかな異常は認めず (Fig. 1A)、海綿静脈洞炎および化膿性髄膜炎の診断で抗生剤・ステロイドの投与を開始した。しかし、入院3日目の髄液細胞数は 15,960/3 と著増したため、トブラシン髄腔内投与を開始したところ、CRP、髄液細胞数ともに低下し、入院35日目に正常に復した。神経学的には、入院7日目に右動眼神経麻痺が消失したものの、同日、左全外眼筋麻痺が出現した。頭部 CT では両側海綿静脈洞の拡大を示し、造影 CT では左海綿静脈洞内に円形の造影像を認めた (Fig. 1B, C)。MRI T2 像では、左海綿静脈洞内に動脈瘤と思われる flow void sign を認め、さらに造影 T1 像では左海綿静脈洞に強度の enhancement を認め、その外側に flow void sign を認めた

Fig. 2 A, B : T2-weighted coronal MR images show a flow void sign in the left cavernous sinus.
C, D : T1-weighted images. Contrast MR image (C) reveals compression of left internal carotid artery and a flow void sign in the cavernous sinus.

(Fig. 2)。脳血管撮影では、右内頸動脈海綿静脈洞部に動脈瘤様の壁不整と、左内頸動脈海綿静脈洞部に 20×18 mm の動脈瘤を認めた (Fig. 3)。その後神経学的に症状悪化なく経過観察していたが、入院2カ月目の脳血管撮影で動脈瘤は 32×19 mm へと拡大した (Fig. 4A)。このため手術を計画し、手術に先だって左内頸動脈の balloon occlusion test を20分間行ったが、神経学および脳波所見上も悪化なく、stump pressure が 50 mmHg であることを確認した。

手術所見：1992年7月6日手術を施行した。手術は、左前頭側頭開頭後、まず STA-MCA anastomosis (浅側頭動脈-中大脳動脈吻合術) を行い、次いで動脈瘤の premature rupture に備えて頸部にて左内頸動脈を確保したのち、動脈瘤に approach した。硬膜内より前床突起切除の操作中に動脈瘤が破裂し、やむなく頸部で左内頸動脈を結紮して、眼動脈の proximal にはクリップを挿入できるスペースがなかったため distal で内頸動脈に杉田クリップをかけ、動脈瘤の trapping を行った。trapping 後動脈瘤を観察すると、動脈瘤壁は海綿静脈洞外壁と一体となっており、外側壁を切除後、動脈瘤内腔に内頸動脈と通ずると思われる小孔よりジワジワと出血を認め、これにオキシセル綿を詰め止血した (Fig. 5)。海綿静脈洞内側壁は開放せずそのままとした。

病理所見：動脈瘤壁は硝子化した結合織よりなり、明らかな血管成分は認めず、炎症性の細胞浸潤にも乏しかった。

術後経過：手術後は、幸いにも左眼視力は 0.3 で術前と変化なく、また新たに出現した神経学的欠損症状もなく、8月10日退院となった。2年後の現在、左動眼神経麻痺は部分的な改善を認めるが、左外転神経麻痺、左三

A/B

Fig. 3 A : A right carotid angiogram discloses aneurysmal dilatation at the site of the branching of the tentorial artery.

B : A left carotid angiogram reveals a large aneurysm in the cavernous sinus.

A/B

Fig. 4 A : A follow-up left carotid angiogram reveals an enlargement of the aneurysm.

B : A postoperative left carotid angiogram shows the disappearance of the aneurysm and a good bypass circulation.

- 1 : Oozy bleeding occurred from this small opening, and it is thought that this opening is the aneurysmal neck.
- 2 : Ophthalmic artery
- 3 : Clipping was done at this site.

Fig. 5 Scheme of the operative view
The lateral wall of the aneurysm was removed.

Table 1 Bacterial aneurysms of the internal carotid artery

Case	Authors	Year	Age	Sex	Loc	M	S	CS	FA	Treatment	Outcome
1	Barker ³⁾	1954	32	M	BL	+	-	+	-	conservative	dead
2	Devadiga, et al ⁵⁾	1969	1	M	L	-	-	+	Di	conservative	good
3	Suwanwela, et al ¹⁹⁾	1972	6	M	L	+	+	+	De	conservative	good
4			6	F	R	-	+	+	Di	conservative	good
5			10	M	R	+	+	+	-	conservative	good
6			33	M	R	-	-	+	-	RCCA ligation	good
7	Adeloye, et al ²⁾	1973	19	M	R	+	+	+	De	conservative	good
8	Lansky & Maxwell ¹⁴⁾	1975	7	M	R	+	+	+	En	RCCA ligation	good
9	Shibuya, et al ¹⁸⁾	1976	42	F	L	+	+	+	En	trapping	good
10	Johnston ¹²⁾	1979	3	M	BL	+	-	+	En	RICA ligation	good
									(both)	& L wrapping	
11	Tomita, et al ²¹⁾	1981	2	M	R	+	+	+	En	RICA ligation	good
12	Eguchi, et al ⁷⁾	1982	22	M	BL	+	-	+	-	RSTA-MCA & RICA ligation	good
										LSTA-MCA & LICA ligation	
13	Rout, et al ¹⁷⁾	1984	2	F	L	+	-	+	Di	conservative	good
14			5	M	L	+	-	+	-	LICA ligation	good
15			6	F	L	+	-	+	-	conservative	good
16			18	F	R	-	-	+	En	conservative	good
17			32	F	R	+	-	+	-	conservative	good
18			59	M	R	+	-	+	En	RCCA ligation	good
19	Abbassioun, et al ¹⁾	1985	6	F	BL	+	+	+	Nc	RICA ligation	good
20	Issacs & van Dellen ¹¹⁾	1986	10	M	R	-	+	+	De	conservative	good
21	Miyata, et al ¹⁶⁾	1988	48	F	L	+	-	+	De-En	LSTA-MCA & LICA ligation	good
										(staged operation)	
22			33	M	L	-	+	+	En	LICA ligation	good
23	Du Plessis & van Rensburg ⁶⁾	1988	10	F	R	-	-	+	-	RICA ligation	good
24	Fukushima, et al ⁸⁾	1990	31	M	L	+	-	+	Nc	conservative	good
25	Todo & Inoya ²⁰⁾	1991	44	M	L	+	-	+	De	conservative	good
26	Hurst, et al ¹⁰⁾	1992	45	M	R	-	-	-	-	(RICA balloon occlusion)	good
27	Present case	1993	56	M	L	+	-	+	En	LSTA-MCA & LICA trapping	good

Loc : site of the aneurysm M : meningitis S : sepsis or endocarditis FA : follow-up angiography CS : cavernous sinus syndrome BL : bilateral R : right L : left Di : disappeared De : decreased En : enlarged Nc : no change CCA : common carotid artery ICA : internal carotid artery MCA : middle cerebral artery STA-MCA : superficial temporal-middle cerebral artery anastomosis

叉神経第1枝領域の知覚過敏，左眼視力には変化は認めていない．手術後1年目の脳血管撮影では，右内頸動脈海綿静脈洞の壁不整に変化を認めず，左内頸動脈海綿静脈洞の動脈瘤は描出されず，STA-MCA anastomosis の patency も良好であった (Fig. 4B)．

考 察

内頸動脈海綿静脈洞部に発生した細菌性動脈瘤は，われわれの症例を含めて27例の報告^{1)~3)5)~8)10)~12)14)16)~21)}がある (Table 1)．年齢は1~59歳，平均22.9歳で，そのうち15歳以下の小児が13例 (48.1%) と多数を占める．性別は男17例，女10例と男性に多い．両側性のものが4例で，一側に2個の動脈瘤を認めたものが1例あった．27例中26例で海綿静脈洞症候群を生じているが，顔面およびその周囲，口腔内，副鼻腔の感染に引き続き発症したものが多く (26例中15例，57.7%)，その

経過よりそのうちの大多数が海綿静脈洞炎を生じていたと推察される．また髄膜炎の合併も多く19例 (70.4%) に認められ，敗血症の合併した症例は10例 (37.0%) であった．

細菌性脳動脈瘤の発生機序としては，①心内膜炎由来の embolic origin，②周囲感染巣からの extra vascular origin，③明らかな感染巣のない primary あるいは cryptogenic が想定されている¹⁹⁾．Abbassioun ら¹⁾は，細菌性脳動脈瘤のうち末梢部のもものでは embolic origin，近位部のもの多くは paravascular origin であるとしている．一方，Kojima ら¹³⁾が集計した頭蓋内細菌性脳動脈瘤131例中，23.3%は多発例であるが，内頸動脈海綿静脈洞部の動脈瘤と頭蓋内細菌性脳動脈瘤を合併した症例は，Suwanwela ら¹⁹⁾の報告した1例のみであった．さらに Kojima らの報告では，内頸動脈海綿静脈洞部の動脈瘤を除いた113例中94例 (83.2%) に細菌性心内膜炎を合併しているが，われわれの渉猟した27例の中

には、細菌性心内膜炎を合併した症例は1例もなかった。これらのことより、頭蓋内細菌性脳動脈瘤の中でも内頸動脈海綿静脈洞部に発生するものの多くは paravascular origin である可能性が高いと考えられる。

病理所見については、詳細な報告例はない。われわれの症例では、炎症性の細胞浸潤もなく、spontaneous な動脈瘤との鑑別は困難である。しかし、得られた病理組織は発症後3カ月の慢性期であることから、炎症所見が消退したのではないかと推察された。

CTは10例で施行されているが、うち8例では海綿静脈洞部に異常造影像を認めている。海綿静脈洞が外側に膨隆し、同部がhomogenous enhancement されたり、あるいは半円状のlow density area を伴って造影されるなど、通常の見方⁴⁾とは違い特徴的と考えられる。

脳血管撮影は、Barker³⁾の報告した剖検例を除き全例でなされている。初回検査時の脳動脈瘤の最大径の記載のあるものは12例で、大きさは1.1～3.2 cm (平均1.98 cm)と比較的大きい。経過を追ってなされた脳血管撮影では18例20個の脳動脈瘤中、消失3個、縮小4個、不変2個、拡大10個、縮小後拡大1個となっており、拡大を示したものが55%と多数を占める。また、消失を認めたのはいずれも6歳以下の小児であった。さらに、消失した症例の脳血管撮影は初回より2～22カ月(平均10.3カ月)後になされているが、拡大した症例では6～56日(平均22.6日)後になされている。したがって、拡大は比較的短期間に生じており、動脈瘤の経過を追って観察する場合は、3～4週毎に脳血管撮影がなされるべきと考えられる。

手術的治療は13例でなされ、その転帰はいずれも良好であったと報告されている。Routら¹⁷⁾は、入院後4～6週でophthalmoplegiaが改善、あるいは血管撮影上動脈瘤が不変または縮小するようであれば保存的治療を続け、ophthalmoplegiaが不変あるいは動脈瘤が拡大する場合は、carotid ligationを行うべきと報告している。一方Isaacsら¹¹⁾は、動脈瘤の完全な閉塞のためには内頸動脈のligationのみでは不十分で、trappingが最良としている。われわれの症例では、ligationやtrappingのみではhemodynamic stressにより反対側の動脈瘤様拡大部が増大してくることが懸念され¹⁵⁾、あらかじめSTA-MCA anastomosisを施行した。また、脳血管撮影所見では内頸動脈海綿静脈洞部の形態が保たれており、neck clippingも可能と考えてdirect approachを選択した。しかし、結果的にはtrappingに終わり、手術前の計画が不十分であったといわざるをえない。さらには、

余分な出血を避けるため海綿静脈洞内側部の開放を行わなかったが、この場合内頸動脈海綿静脈洞部を確認し、眼動脈を温存するようにクリップをかけ直すべきであったと反省している。われわれの症例では、幸いにも手術後も左視力は保たれていた。手術後の左頸動脈撮影では、外頸動脈を介して眼窩上動脈が造影されており、眼動脈系への血流がある程度保たれているものと推察された。

またわれわれの症例の術中所見で、動脈瘤壁は海綿静脈洞壁と一体となり脆くなっていたが、Johnston¹²⁾も同様の報告をしている。26例の報告例中、動脈瘤の破裂を生じた症例はBarkerの報告した死亡例1例のみであるが、内頸動脈海綿静脈洞部の非細菌性の動脈瘤でも頭蓋内へ破裂した例があり⁹⁾、やはり動脈瘤が拡大する場合は、ligationにしるtrappingにしる外科的治療を要すると思われる。またHurstら¹⁰⁾は、balloon occlusionを行い良好な結果を得ている。上述のように動脈瘤壁は脆くて出血しやすく、direct approachでは術中破裂の危険性も高いと考えられ、今後は試みてみるべき治療法と思われる。

結 語

- 1) 海綿静脈洞炎に続発した細菌性動脈瘤の1例を報告した。
- 2) 動脈瘤の経過を観察するためには、3～4週毎に脳血管撮影を行うべきと考えられた。
- 3) 動脈瘤が増大する例では、手術的治療が適応となると考えられた。

文 献

- 1) Abbassioun K, Amirjamshidi A, Rahmat H: Bilateral mycotic aneurysms of the intracavernous carotid artery. *Neurosurgery* 16: 235-237, 1985.
- 2) Adeloje A, Singh SP, Osinowo O: Extravascular mycotic aneurysm of the intracavernous portion of the internal carotid artery. *West Afr Med J* 22: 44-46, 1973.
- 3) Barker WF: Mycotic aneurysms. *Ann Surg* 139: 84-89, 1954.
- 4) Chung JW, Chang KH, Han MH, Kim BH, Song CS: Computed tomography of cavernous sinus diseases. *Neuroradiology* 30: 319-328, 1988.
- 5) Devadiga KV, Mathai KV, Chandy J: Spontaneous cure of intracavernous aneurysm of the internal carotid artery in a 14-month-old child. Case report. *J Neurosurg* 30: 165-168, 1969.
- 6) Du Plessis JJ, van Rensburg MJ: Bacterial aneurysm of the intracavernous carotid artery secondary to suppurative otitis media. A case report. *SAMJ* 73: 185-186, 1988.

- 7) Eguchi T, Nakagomi T, Teraoka A : Treatment of bilateral mycotic intracavernous carotid aneurysms. Case report. *J Neurosurg* **56** : 443-447, 1982.
- 8) 福島一成, 渡引康公, 佐藤雄一, 長田 乾, 平田 温 : 化膿性髄膜炎に伴い内頸動脈海綿静脈洞に発生した細菌性動脈瘤の1例. *神経内科* **32** : 99-101, 1990.
- 9) Hodes JE, Fletcher WA, Goodman DF, Hoyt WF : Rupture of cavernous carotid artery aneurysm causing subdural hematoma and death. Case report. *J Neurosurg* **69** : 617-619, 1988.
- 10) Hurst RW, Choi IS, Persky M, Kupersmith M : Mycotic aneurysms of the intracavernous carotid artery : A case report and review of the literature. *Surg Neurol* **37** : 142-146, 1992.
- 11) Isaacs BA, van Dellen JR : Persistence of a mycotic aneurysm of the intracavernous carotid artery. *Surg Neurol* **26** : 577-580, 1986.
- 12) Johnston I : Direct surgical treatment of bilateral intracavernous internal carotid artery aneurysms. Case report. *J Neurosurg* **51** : 98-102, 1979.
- 13) Kojima Y, Saito A, Kim I : The role of serial angiography in the management of bacterial and fungal intracranial aneurysms—Report of two cases and review of the literature. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **29** : 202-216, 1989.
- 14) Lansky LL, Maxwell JA : Mycotic aneurysm of the internal carotid artery in an unusual intracranial location. *Develop Med Child Neurol* **17** : 79-88, 1975.
- 15) Linskey ME, Sekhar LN, Horton JA, Hirsch WL Jr, Yonas H : Aneurysms of the intracavernous carotid artery : a multidisciplinary approach to treatment. *J Neurosurg* **75** : 525-534, 1991.
- 16) 宮田嘉世子, 広瀬隆一, 早川 功, 神田 直, 田崎義昭 : 内頸動脈海綿静脈洞部に発生した細菌性動脈瘤の2症例. *脳卒中* **8** : 167-174, 1986.
- 17) Rout D, Sharma A, Mohan PK, Rao VRK : Bacterial aneurysms of the intracavernous carotid artery. *J Neurosurg* **60** : 1236-1242, 1984.
- 18) Shibuya S, Igarashi S, Amo T, Sato H, Fukumitsu T : Mycotic aneurysms of the internal carotid artery. Case report. *J Neurosurg* **44** : 105-108, 1976.
- 19) Suwanwela C, Suwanwela N, Charuchinda S, Hongsa-prabhas C : Intracranial mycotic aneurysms of extravascular origin. *J Neurosurg* **36** : 552-559, 1972.
- 20) Todo T, Inoya H : Sudden appearance of a mycotic aneurysm of the intracavernous carotid artery after symptoms resembling cluster headache : Case report. *Neurosurgery* **29** : 594-598, 1991.
- 21) Tomita T, McLone DG, Naidich TP : Mycotic aneurysm of the intracavernous portion of the carotid artery in childhood. Case report. *J Neurosurg* **54** : 681-684, 1981.

要 旨

海綿静脈洞炎に続発した内頸動脈海綿静脈洞部細菌性動脈瘤の1例

久田 均 高良 英一 笠井 直人 比嘉 靖

海綿静脈洞炎に引き続き、内頸動脈海綿静脈洞部に細菌性動脈瘤が生じた1例を報告した。過去の26例の報告例について文献的考察を加えたところ、1) 15歳以下の小児および男性に多い(48.1%), 2) 顔面周囲の感染巣が先行することが多い(57.7%), 3) 髄膜炎の合併が多い(70.4%), 4) 経過をおって拡大する例が多い(55%), 5) 生命予後は良好である(96.3%)などの特徴を有していた。文献的考察およびわれわれの経験より、動脈瘤拡大例に対しては internal carotid artery ligation あるいは trapping などの手術的治療を要すと考えられた。

脳外誌 4 : 415-420, 1995