

眼球運動障害を主徴とした頸動脈海綿静脈洞瘻の 3 例

岸 茂¹⁾, 澤田 章宏²⁾, 森 貴久³⁾, 安岡美智子⁴⁾

¹⁾高知医科大学眼科学教室, ²⁾高知医科大学放射線医学教室

³⁾高知医科大学脳神経外科学教室, ⁴⁾高知県立安芸病院眼科

要 約

背 景：頸動脈海綿静脈洞瘻 (CCF) の中には眼球のうっ血症候の乏しい例が存在し、それらに対する的確な診断が望まれる。

症 例：患者はうっ血症候のない CCF 3 例で、いずれも片眼性の外転制限を発症し、当科を受診した。

所 見：超音波カラードプラ検査で、両側の上眼静脈は逆行性血流を示しており、脳血管造影検査によって CCF が確認された。

結 論：うっ血症候が乏しく、眼球運動障害が唯一の眼所見である CCF は診断に苦慮することが少なくない。こうした場合、超音波カラードプラ検査を行うことによって CCF の存在が判明する。(日眼会誌 103:597-603, 1999)

キーワード：頸動脈海綿静脈洞瘻, 眼球運動障害, 超音波カラードプラ, 上眼静脈, 逆行性血流

Three Cases of Carotid Cavernous Sinus Fistulas where the Main Ocular Manifestation was Restricted Ocular Motility

Shigeru Kishi¹⁾, Akihiro Sawada²⁾, Takahisa Mori³⁾ and Michiko Yasuoka⁴⁾

¹⁾Department of Ophthalmology, Kochi Medical School

²⁾Department of Radiology, Kochi Medical School

³⁾Department of Neurosurgery, Kochi Medical School

⁴⁾Department of Ophthalmology, Kochi Prefectural Aki Hospital

Abstract

Background : Some cases of carotid cavernous sinus fistulas (CCFs) have few ocular congestive signs and symptoms. These cases need to be accurately diagnosed as having CCFs.

Cases : Three patients with CCFs without ocular congestive signs or symptoms developed unilateral abducens restriction and visited our clinic.

Findings : Color Doppler imaging revealed retrograde flow of the superior ophthalmic veins bilaterally in the three cases. The diagnose of CCF was confirmed by cerebral angiography.

Conclusion : It is sometimes difficult to diagnose CCF, when a patient without ocular congestive signs or symptoms shows disturbed ocular motility as the only ocular manifestation. In such cases, color Doppler imaging may show the presence of CCF. (J Jpn Ophthalmol Soc 103:597-603, 1999)

Key words : Carotid cavernous sinus fistula, Restricted ocular motility, Color Doppler imaging, Superior ophthalmic vein, Retrograde flow

I 緒 言

頸動脈海綿静脈洞瘻(以下, CCF)の一般的な眼症候としては、球結膜血管の怒張、眼球突出、眼球運動障害などがよく知られている^{1,2)}。このうち、眼球運動障害は眼窩、眼球のうっ血による機械的運動制限と、海綿静脈洞内、もしくは外壁内を走る眼筋支配神経が洞内圧上昇によって

麻痺に陥り、その結果生じる神経原性運動障害とに分けることができる。また、CCF は内頸動脈本幹から直接、海綿静脈洞へ血液が流入する direct CCF と硬膜枝を介して流入する dural CCF とに区別され、通常、後者は前者に比べ血液短絡量は少ない¹⁾。したがって、dural CCF は direct CCF に比較して眼球のうっ血症候が著明でないことが多く、中にはほとんどうっ血症候を示さない例も

別刷請求先：783-8505 南国市岡豊町小蓮 高知医科大学眼科学教室 岸 茂
(平成 10 年 4 月 24 日受付, 平成 11 年 5 月 7 日改訂受理)

Reprint requests to: Shigeru Kishi, M.D. Department of Ophthalmology, Kochi Medical School, Kohasu, Oko-cho, Nankoku 783-8505, Japan

(Received April 24, 1998 and accepted in revised form May 7, 1999)

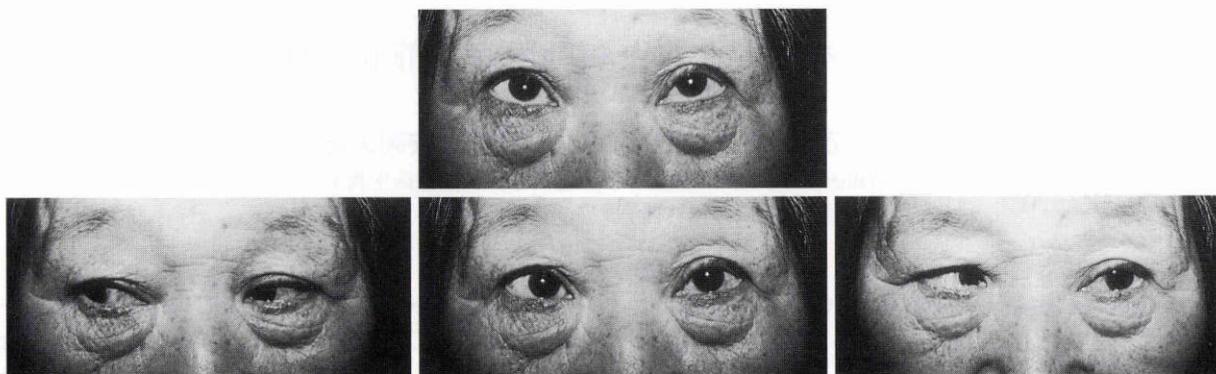


図1 症例1の眼位, 眼球運動.
左眼の外転制限がみられる.

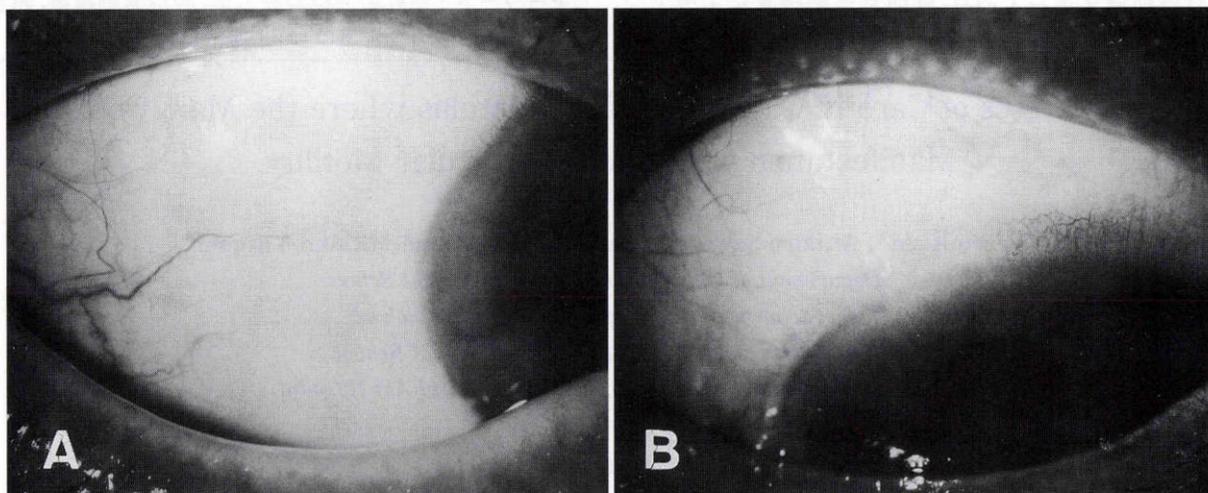


図2 症例1の前眼部像.
両眼とも球結膜血管の怒張はみられない。A: 右眼, B: 左眼

存在する。場合によっては眼球運動障害のみが唯一の眼所見であることもあり, こうした時には CCF の診断に苦慮することも少なくない。

一方, CCF の診断は特徴的な眼所見の他, computed tomography (以下, CT), magnetic resonance imaging (以下, MRI) 所見などが決め手となる。確定診断は脳血管造影で頸動脈から fistula を通して海綿静脈洞内, さらには上眼静脈へ造影剤が流入するのを確認することである。ただ, この検査法には若干侵襲性があるため, 汎用されることは少ない。CT, MRI で上眼静脈の拡張があれば, CCF の存在が強く疑われる。

最近になって登場した超音波カラー Doppler (以下, CDI) は非侵襲的で, かつ操作が簡便という特長を有し, 上眼静脈の拡張はもとより血流速度, 方向, さらには脈波形を捕えることが可能である。CCF の有用な診断機器として注目されて久しい^{3)~5)}。

今回, 我々は眼球のうっ血症候が乏しく, 眼球運動障害が唯一の眼所見である CCF の3例を経験した。その診断に際し, CDI の有用性を再認識するに至ったので, 若

干の考察を加え報告する。

II 症 例

症例1: 74歳, 女性。

現病歴: 1997年2月中旬頃から複視を自覚。左方視した時に複視は強い。某病院眼科を受診し, CT, MRI 検査を受けたが, 特に異常は確認されず, 3月5日, 精査のため当科を紹介された。

既往歴: 約1年前に左眼眼内レンズ移植術を受けた。糖尿病, 甲状腺機能異常, 感染症, 外傷の既往はない。

眼科的所見: 視力は右眼 0.4 (0.8 × +2.0 D ⊂ cyl -2.0 DA × 70°), 左眼 0.4 (1.2 × -1.0 D) であった。眼圧は右眼 15 mmHg, 左眼 15 mmHg。眼球突出度はヘルテル眼球突出度計で右眼 14 mm, 左眼 14 mm であった。瞳孔は左右眼ともほぼ正円同大, 対光反応は迅速であった。眼位では左眼が僅かに内斜しており, 左眼の外転制限があった(図1)。両眼とも球結膜血管の怒張はなかった(図2 A, B)。中間透光体では右眼に軽度の白内障があり, 左眼は偽水晶体眼であった。眼底検査で左眼の視神経乳頭上

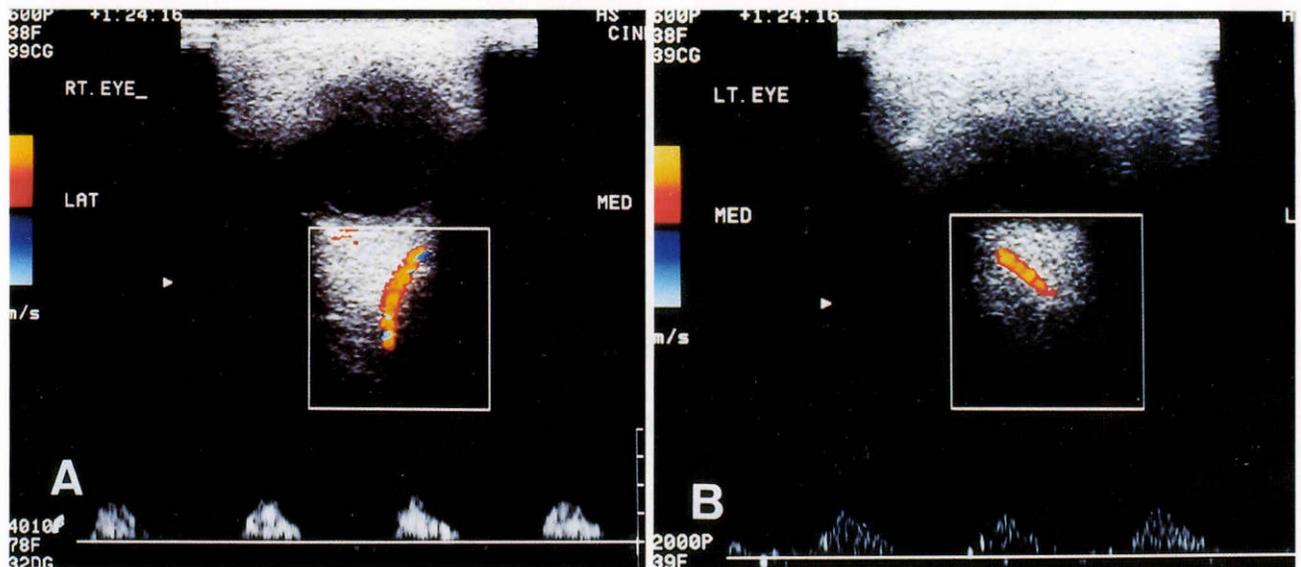


図 3 症例 1 の超音波ドプラ (CDI) 像。

両眼の上眼静脈は逆行性血流を示している。脈波は収縮期のみ出現。プローブに近づく血流は赤～黄色、遠ざかる血流は青で描出される。A：右眼，B：左眼

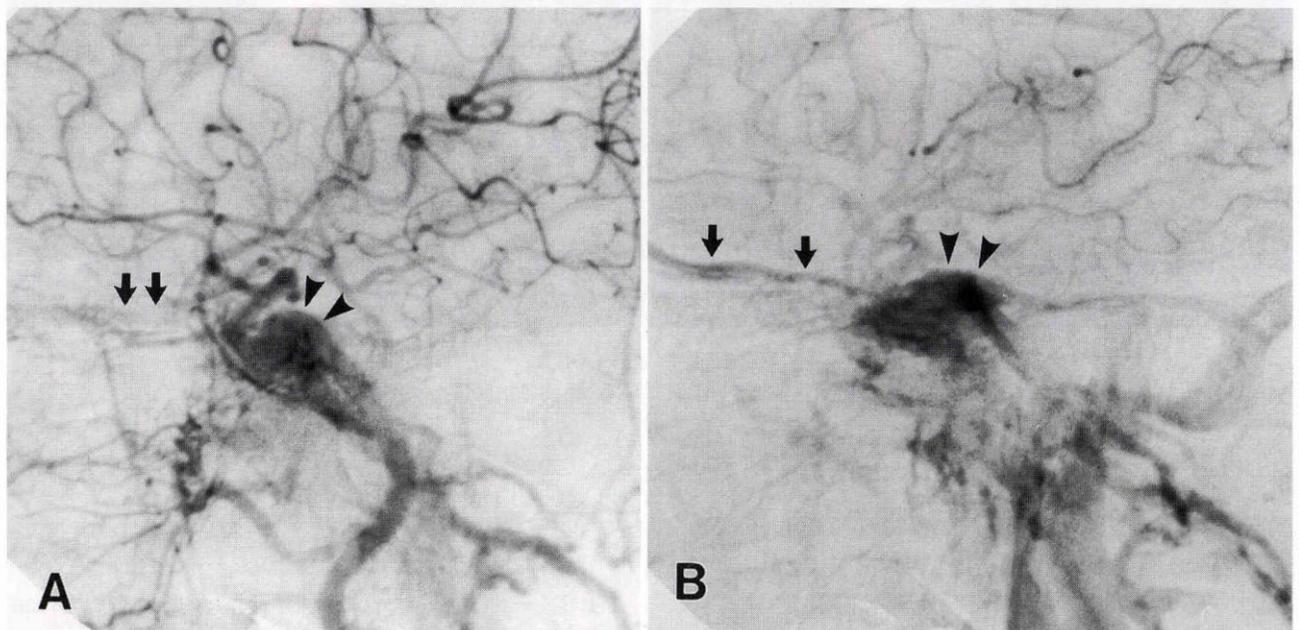


図 4 症例 1 の脳血管造影像。

両側とも造影剤は頸動脈から fistula を通って海绵静脈洞(矢じり)，さらに同側の上眼静脈(矢印)へ流入している。A：右側，B：左側

方に網膜細動脈瘤による浸出斑があったが，両眼とも網膜静脈のはっきりとした拡張はなかった。前医で撮影した頭部 MRI に異常所見は発見されず，右上眼静脈にはっきりとした拡張所見は確認できなかった。

経過：眼窩内血管性病変の存在の可能性を考慮して CDI を施行したところ，両側の上眼静脈に逆行性血流があった。脈波は収縮期のみ出現していた(図 3 A, B)。当院脳神経外科で脳血管造影検査を行った。その結果，両側とも造影剤は内外頸動脈から fistula を通って海绵静脈

洞，さらに同側の上眼静脈へ流入しており(図 4 A, B)，CCF の確定診断がなされた。

症例 2：60 歳，男性。

現病歴：1997 年 3 月初め頃から複視を自覚。左方視で複視は強い。某眼科で左眼の外転制限を指摘され当院内科に入院した。眼科的精査のため当科紹介となった。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

眼科的所見：視力は右眼 1.5(矯正不能)，左眼 1.2(矯正不能)。眼圧は右眼 13 mmHg，左眼 13 mmHg であ



図5 症例2の眼位, 眼球運動。
左眼の外転制限がみられる。

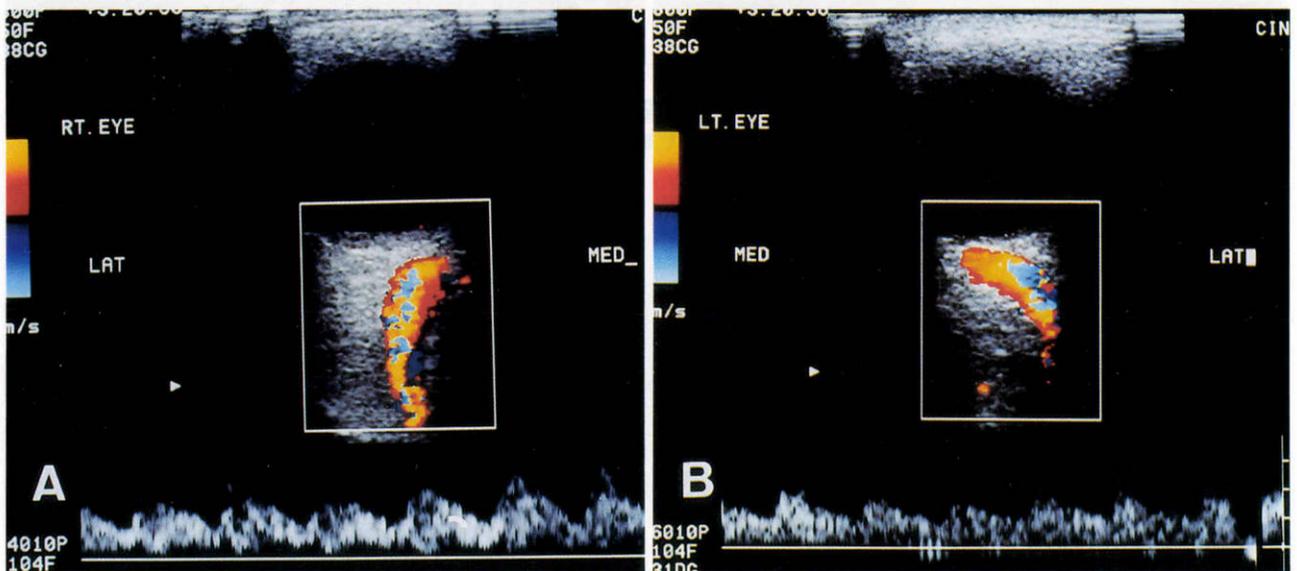


図6 症例2のCDI像。
両眼の上眼静脈は著明に拡大し, 逆行性血流を示している。脈波は拍動性を呈している。A: 右眼, B: 左眼

た。眼球突出度はヘルテル眼球突出度計で右眼 16 mm, 左眼 16 mm。瞳孔は左右眼とも正円同大で, 対光反応は迅速であった。左眼は僅かに内斜し, 外転制限を呈していた(図5)。両眼とも球結膜血管の怒張はなく, 眼底検査においてもはっきりとした網膜静脈の拡張はなかった。

経過: 眼窩内血管性病変の存在も考慮し, CDIを施行したところ, 両側の上眼静脈は著明に拡張し, 逆行性血流を示していた。脈波は拍動性であった(図6 A, B)。当院脳神経外科で脳血管造影検査を行った。その結果, 両側とも造影剤は内外頸動脈から fistula を通って海绵静脈洞, さらに同側の上眼静脈へ流入しており(図7 A, B), CCFの存在が確定した。

症例3: 69歳, 女性。

現病歴: 1997年7月初め頃から複視を自覚した。複視は右方視で増強。某眼科を受診し, 右眼外転神経麻痺の診断を受けた。その後, 複視は自然消失。9月16日, 眼科的精査のため当科紹介となった。

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし。

眼科的所見: 視力は右眼0.2(0.8×+2.25D), 左眼0.6(1.0×+2.0D-cyl-0.5DA×95°)。眼圧は右眼16 mm-Hg, 左眼14 mmHgであった。眼球突出度はヘルテル眼球突出度計で右眼14 mm, 左眼14 mm。瞳孔は左右眼とも正円同大で, 対光反応は迅速であった。眼位, 眼球運動は正常で, 患者に複視の自覚はなかった。両眼とも球結膜血管の怒張はみられず, 中間透光体には軽度の白内障があった。眼底検査において両眼とも軽度の動脈硬化所見以外, 特に異常はなかった。

経過: 眼窩内血管性病変の存在も考慮して CDIを施行した。両側の上眼静脈は拡張し, 逆行性血流を呈していた。脈波は拍動性を有していた(図8 A, B)。当院脳神経外科で脳血管造影検査を行った。その結果, 両側とも造影剤は内外頸動脈から fistula を通って海绵静脈洞, さらに同側の上眼静脈へ流入しており(図9 A, B), CCFの存在が明らかとなった。

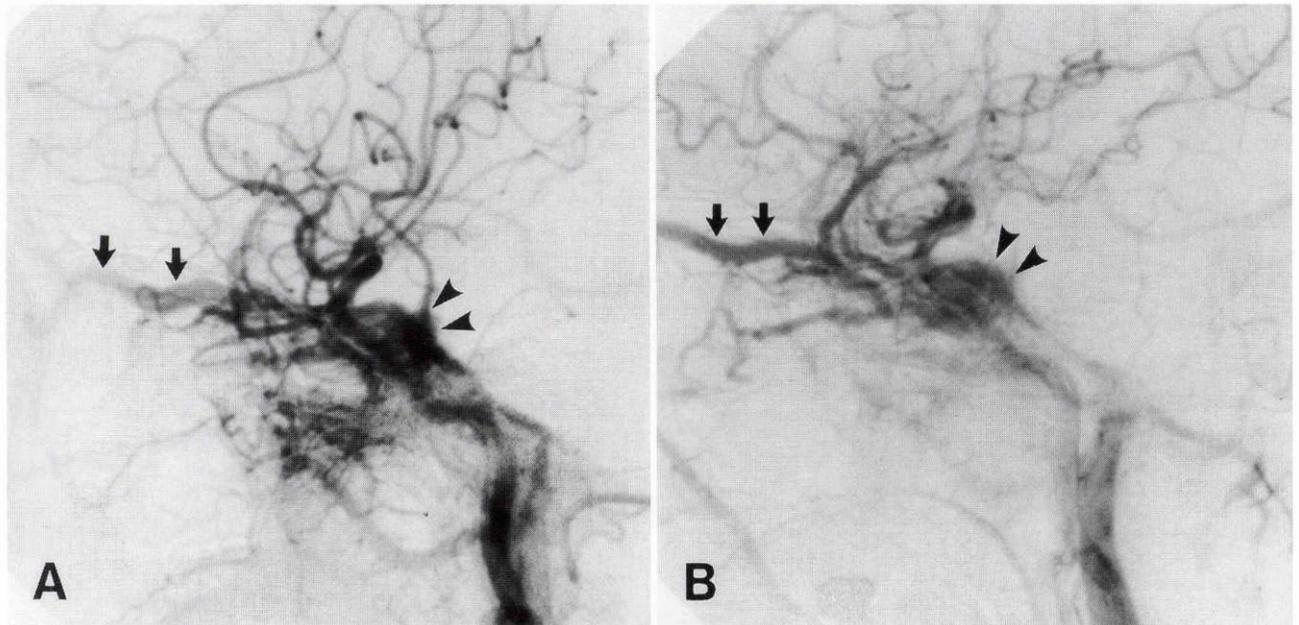


図 7 症例 2 の脳血管造影像.

両側とも造影剤は頸動脈から fistula を通して海綿静脈洞(矢じり), さらに同側の上眼静脈(矢印)へ流入している. A: 右側, B: 左側

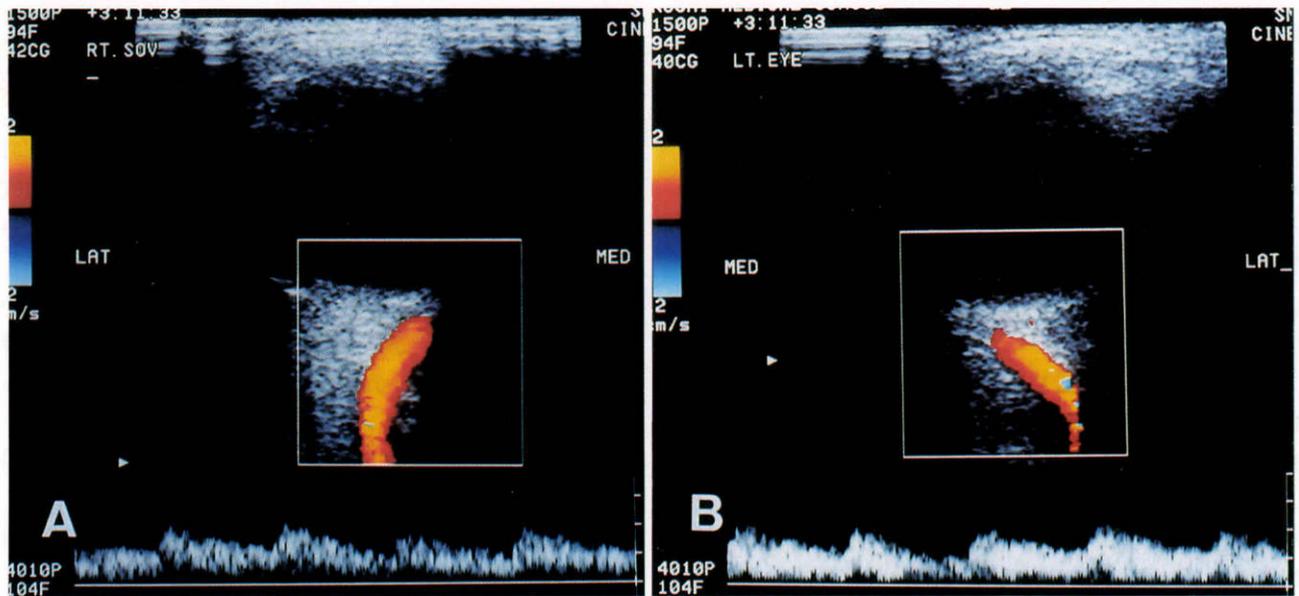


図 8 症例 3 の CDI 像.

両側の上眼静脈は拡張し, 逆行性血流を示している. 脈波は拍動性を有している. A: 右眼, B: 左眼

III 考 按

今回の 3 例はいずれも片眼性の外転制限で発症した。こうした後天性で片眼性の外転制限をみた時、どのような病因を考えるか。まず、外転神経麻痺以外の神経-筋接合部、外眼筋自体の障害として吹き抜け骨折、重症筋無力症が挙げられるが、これらは外傷の既往がないこと、症状に日内の動揺がなく、恒常性であることから考えにくい。その他、眼窩筋炎のような前眼部炎症、眼窩痛、眼瞼下垂

の症候はない。甲状腺眼症については両側性でなく、眼瞼後退症や Graefe 症候などがみられないことから可能性は低い。特に症例 1 では当科受診前に撮影した MRI において外眼筋の腫大はない。後からわかったことではあるが、症例 2, 3 においても後日撮影した CT, MRI で筋腫大の所見はなかった。

こうしてみると、今回の 3 例においては、原因疾患の特定は難しいが、いずれも外転神経麻痺を発症したものと考えられる。外転神経は脳幹の外転神経核から錐体尖、海

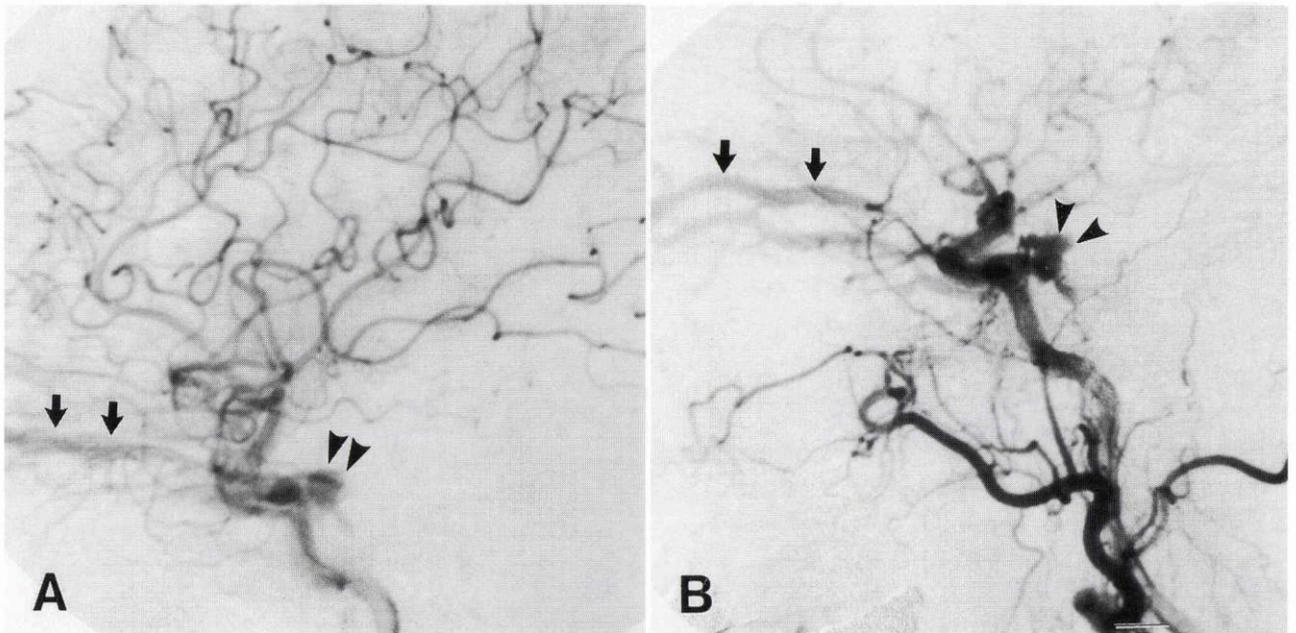


図9 症例3の脳血管造影像。

両側とも造影剤は頸動脈から fistula を通って海綿静脈洞(矢じり), さらに同側の上眼静脈(矢印)へ流入している。A: 右側, B: 左側

綿静脈洞, 上眼窩裂を通して眼窩内へ至る。この経路のいずれかの部位に局在性の圧迫性病変, 炎症, 血管障害, 変性が起これば, 外転神経麻痺が生じる⁶⁾⁷⁾。一方, 非局在性の病因としては, 脳圧亢進, 頭部外傷, 糖尿病, 髄膜炎などが挙げられるが, このうち, 糖尿病の有無は重要であろう。3例とも糖尿病の既往歴はなかったとはいえ, 糖代謝障害の重症度と脳神経麻痺の発生との間に相関性はないとされており⁷⁾, 糖負荷試験による糖尿病の検索は必須であると思われる。

我々の施設ではCT, MRIよりも容易にCDIが行える体制が確立されており, 少しでも眼窩内血管性変化の存在が疑われる症例に対しては積極的にCDIを施行するようにしている。それゆえに今回は初期の段階でCCFが発見されたわけであるが, もし, CDIで異常所見が検出されなかった場合には, 糖負荷試験や神経放射線学的検査を含め, 徹底的に外転神経麻痺の原因を究明しなければならない。

CCF患者における特徴的なCDI所見は, 上眼静脈の拡張, 逆行性血流, そして拍動性脈波の存在である^{3)~5)}。上眼静脈は眼窩内において最大の静脈で, 視神経上を内鼻側から外方に弧を描いて海綿静脈洞に達している。この解剖学的特徴をしっかりと把握していれば, CDI上, 約90%以上の症例で上眼静脈を描出することができる⁴⁾。

CDIで上眼静脈の逆行性血流を示すのが, すべてCCF症例かという点, 必ずしもそうとは限らない。Berges⁴⁾は眼窩先端部腫瘍と海綿静脈洞血栓において上眼静脈の逆行性血流をみている。しかし, それらの脈波に関しては両者とも拍動性ではなく, 平坦であったとしている。その

他, 著明な甲状腺眼症でも上眼静脈の逆行性血流がみられるとの報告があるが, 脈波に拍動性はない⁸⁾。したがって, CDIで上眼静脈の逆行性血流と拍動性脈波を同時に確認できれば, CCFの存在を確定して間違いはないと考えられる。しかし, CCF患者において上眼静脈の拍動性脈波は, 必ずしも明瞭でないこともしばしばなので, 留意する必要がある。

もし, CCF患者の海綿静脈洞もしくは上眼静脈に血栓が形成されると, 上眼静脈内の血流は停滞するため, 血管内からドプラ信号は検出されず, 血管拡張を伴ったflow voidのCDI像を呈することになる⁵⁾⁹⁾。このような場合, CDI所見のみではCCFと他の海綿静脈洞病変とを鑑別するのは困難であり, CDIの有用性は低い。

その他, CDI上, CCFとの鑑別を要する疾患として眼窩血管性腫瘍や動静脈奇形があるが, これらについては先に述べた上眼静脈の解剖学的特徴を熟知していれば, 鑑別はさほど困難ではない。両者とも病変部の血流方向は不規則で, CDIでは赤色と青色が混在していることが多い¹⁰⁾。また, 間歇性眼球突出を発現する眼窩静脈瘤はValsalva manoeuvreによって上眼静脈の血流方向が順行から逆行へ逆転するのが, CDI上の特徴とされている。なお, 脈波は常に拍動性を示さない¹¹⁾。

今回の3例のうち, 症例2, 3はCDIで上眼静脈の拡張, 逆行性血流, そして拍動性脈波の3所見があった。症例1では, 上眼静脈の拡張は明らかではなく, また, 脈波は収縮期のみに出現していた。これは前二者に比べ, fistulaを通したshunt圧が低かったためと想像される。ともかく, CDIで上眼静脈の拡張, 逆行性血流, さらに拍動

性脈波が確認できたので、脳血管造影検査を行う前に CCF の診断が確定したわけである。

しかし、これら 3 所見がないからといって CCF の存在を否定することはできない。すなわち、症例 1 のように shunt 圧が低かったり、短絡血液量が少なかったような場合には、上眼静脈の拡張所見は得られないし、海綿静脈洞内や上眼静脈内に血栓を形成したような時は、逆行性血流ではなく、flow void の CDI 像を示す。さらに、内頸動脈からの shunt 圧が上眼静脈に伝わりにくい場合には脈波は拍動性に乏しく、時には平坦な脈波を呈することもある。この原因については海綿静脈洞内が隔壁により多くの compartment に分かれていることが関係していると推察される。すなわち、動脈血短絡部と上眼静脈開口部とが離れていると、その間にいくつかの隔壁が介在して、shunt 圧が上眼静脈まで伝わりにくく、その結果、拍動性が減弱されるものと考えられる。

もう一つ問題となるのは、CDI が眼窩内の上眼静脈の一部を描出するだけで、CT、MRI のようにほぼ全長にわたって描出することが困難な点である。そのため、既存の眼窩内静脈が側副路形成によって拡張したような場合、時に上眼静脈との判別に迷うこともあり得る。一方、CT、MRI は上眼静脈の血流動態を捕えることはできないが、眼窩内のほぼ全長にわたって上眼静脈を描出することが可能であり、さらに、拡張所見は CDI より明瞭である。それゆえ、CDI で上眼静脈の同定に迷う時には CT、MRI 検査を行い、総合的に判断を下すのが賢明と考えられる。

Kurata ら¹²⁾は眼うっ血症候を示した CCF 症例と示さなかった症例の脳血管造影所見の違いを検討している。それによると、眼うっ血症候を呈した CCF 症例は海綿静脈洞からの流出路が主に上眼静脈であったのに対して、うっ血症候を示さなかった症例では上眼静脈を含めて少なくとも 3 つの流出路を有していたという。今回の 3 例における海綿静脈洞からの流出路は上眼静脈と下錐体静脈洞に至るものの 2 つが共通してみられ、いずれも両側性であった。さらにその上、症例 1, 2 の左側には、それぞれ上錐体静脈洞への流出路、皮質静脈を介した流出路が存在していた。こうしてみると、全例合わせて 4 つないし 5 つの海綿静脈洞からの流出路を有していたことになる。このため、海綿静脈洞からの血流が分散され、一側当たりの上眼静脈の逆流血液量が少なくなり、その結果、うっ血症候が緩和されたものと考えられる。

この他、眼うっ血症候の発生を左右する因子として、静脈還流における側副路形成の有無が挙げられる。眼球から海綿静脈洞への静脈還流がなくても、側副路が発達していれば、眼球からの静脈血や海綿静脈洞からの逆流血液は側副路を通して、眼角静脈もしくは翼状上顎洞へ流出し、眼うっ血症候は生じないこともあり得る。今回の症例においても側副路が発達していたため、うっ血症候がほとんどなかったのかも知れない。

外転神経は海綿静脈洞内を走行しており、内圧上昇の影響を受けやすい。海綿静脈洞は局所的な外転神経麻痺の好発部位の一つであることには変わりはない。我々は眼うっ血症候を示さず、眼球運動障害が唯一の眼症状である CCF の存在を念頭に置く必要がある。

また、一般に検査に当たっては患者の身体的、経済的負担を鑑み、できるだけ少ない検査で的確な診断が下せるよう努めなければならない。この観点から、CCF を含め、少しでも眼窩内血管性病変の存在が疑われる時は、積極的に CDI を行うことが望まれる。

文 献

- 1) Miller NR: Walsh and Hoyt's Clinical Neuro-Ophthalmology, 4th ed. Williams & Wilkins, Baltimore, 2165—2209, 1991.
- 2) Keltner JL, Satterfield D, Dublin AB, Lee BCP: Dural and carotid cavernous sinus fistulas. Diagnosis, management, and complications. Ophthalmology 94: 1585—1600, 1987.
- 3) Flaharty PM, Lieb WE, Sergott RC, Bosley TM, Savino PJ: Color Doppler imaging. A new noninvasive technique to diagnose and monitor carotid cavernous sinus fistulas. Arch Ophthalmol 109: 522—526, 1991.
- 4) Berges O: Colour Doppler flow imaging of the orbital veins. Acta Ophthalmol (Suppl) 204: 55—58, 1992.
- 5) Kishi S, Yasuoka M, Mokudai Y, Sawada A, Arisawa M: Diagnosis of carotid cavernous sinus fistula by color Doppler imaging. Proceedings of 15th Congress of the Asia-Pacific Academy of Ophthalmology. Hong Kong, 1995.
- 6) 河合一重: 眼筋麻痺—診断と治療—。日本の眼科 68: 1415—1418, 1997.
- 7) Glaser JS: Infranuclear disorders of eye movement. In: Tasman W, et al (Eds): Duane's Clinical Ophthalmology. Vol 2. Chapter 12, Lippincott-Raven, Philadelphia, 1995.
- 8) 中瀬佳子, 吉川啓司, 井上トヨ子, 井上洋一: 甲状腺視神経症における上眼静脈。臨眼 49: 867—870, 1995.
- 9) Okabe H, Takahashi A, Tamai M: Color Doppler imaging of a spontaneously resolved carotid-cavernous sinus fistula. Am J Ophthalmol 117: 410—411, 1994.
- 10) Lieb WE, Flaharty PM, Ho A, Sergott RC: Color Doppler imaging of the eye and orbit. A synopsis of a 400 case experience. Acta Ophthalmol (Suppl) 204: 50—54, 1992.
- 11) Lieb WE, Merton DA, Shields JA, Cohen SM, Mitchell DD, Goldberg BB: Colour Doppler imaging in the demonstration of an orbital varix. Br J Ophthalmol 74: 305—308, 1990.
- 12) Kurata A, Takano M, Tokiwa K, Miyasaka Y, Yada K, Kan S: Spontaneous carotid cavernous fistula presenting only with cranial nerve palsies. Am J Neuroradiol 14: 1097—1101, 1993.