

# 眼症状で発症した anterior condylar confluence 硬膜動静脈瘻の 1 例

畑辺なな実<sup>1)</sup>, 近間泰一郎<sup>1)</sup>, 園田 康平<sup>1)</sup>, 石原 秀行<sup>2)</sup>, 鈴木 倫保<sup>2)</sup>

<sup>1)</sup>山口大学大学院医学系研究科眼科学

<sup>2)</sup>山口大学大学院医学系研究科脳神経外科学

## 要 約

**目 的**：左眼に結膜充血および眼瞼浮腫が出現し、硬膜動静脈瘻と診断された症例の報告。

**症 例**：63 歳男性。眼瞼浮腫および結膜充血が出現、海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻を疑われ当院脳外科より紹介され受診した。

**所 見**：左眼のみに結膜浮腫および結膜充血を認め海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻としても矛盾のない所見であったが、血管造影検査を施行したところ、anterior condylar confluence に硬膜動静脈瘻が発見された。同部位

に塞栓術を施行したところ、症状は改善した。

**結 論**：Anterior condylar confluence に生じた硬膜動静脈瘻は拍動性耳鳴りを初発症状とすることが多いが、眼症状から発症した 1 例を経験した。(日眼会誌 115 : 905—909, 2011)

**キーワード**：硬膜動静脈瘻, anterior condylar confluence, 内頸動脈海綿静脈洞瘻

## A Case of Anterior Condylar Confluence Dural Arteriovenous Fistula with Initial Onset of Ocular Symptoms

Nanami Hatabe<sup>1)</sup>, Taiichiro Chikama<sup>1)</sup>, Ko-hei Sonoda<sup>1)</sup>, Hideyuki Ishihara<sup>2)</sup> and Michiyasu Suzuki<sup>2)</sup>

<sup>1)</sup>Department of Ophthalmology, Yamaguchi University Graduate School of Medicine

<sup>2)</sup>Department of Neurosurgery, Yamaguchi University Graduate School of Medicine

## Abstract

**Purpose** : To report a case of anterior condylar confluence dural arteriovenous fistula (ACC dAVF) with initial onset of ocular symptoms.

**Case** : A 63-year-old man with conjunctival injection and eyelid edema with a suspected carotid cavernous fistula (CCF) was referred to our department by the department of neurosurgery of our hospital. On his first visit, his left eye showed marked conjunctival injection and eyelid edema OS. Those findings were consistent with CCF, however, three-dimensional angiography indicated a diagnosis of ACC dAVF. His ocular symptoms improved immedi-

ately following transvenous embolization with coils at the shunting point.

**Conclusion** : Although most cases of ACC dAVF start with tinnitus, this case showed ocular abnormalities without tinnitus as the initial symptoms.

Nippon Ganka Gakkai Zasshi (J Jpn Ophthalmol Soc 115 : 905—909, 2011)

**Key words** : Dural arteriovenous fistula, Anterior condylar confluence, Carotid cavernous fistula

## I 緒 言

頭蓋内の硬膜動静脈瘻(dural arteriovenous fistula : dAVF)は硬膜に異常な動静脈短絡(fistula)を生じた疾患であり、fistulaを生じた部位によって症状が異なる。Anterior condylar confluence (ACC)にfistulaを生じるタイプはまれであり、強い拍動性耳鳴りを初発症状とす

ることを特徴としている。今回、ACCにfistulaを生じ、拍動性耳鳴りでなく眼症状で発症した1例を経験したので報告する。

## II 症 例

患者：63歳、男性。

主訴：左眼瞼腫脹、圧痛、結膜充血。

別刷請求先：755-8505 宇部市南小串1-1-1 山口大学大学院医学系研究科眼科学 畑辺なな実  
(平成22年12月24日受付, 平成23年5月25日改訂受理) E-mail: nanami-h@yamaguchi-u.ac.jp

Reprint requests to: Nanami Hatabe, M.D. Department of Ophthalmology, Yamaguchi University Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami-kogushi, Ube-shi, Yamaguchi-ken 755-8505, Japan

(Received December 24, 2010 and accepted in revised form May 25, 2011)

左眼



図 1 初診時前眼部写真.

初診時前眼部写真. 強い結膜充血および結膜血管の著明な腫脹と蛇行, 浮腫を認める.

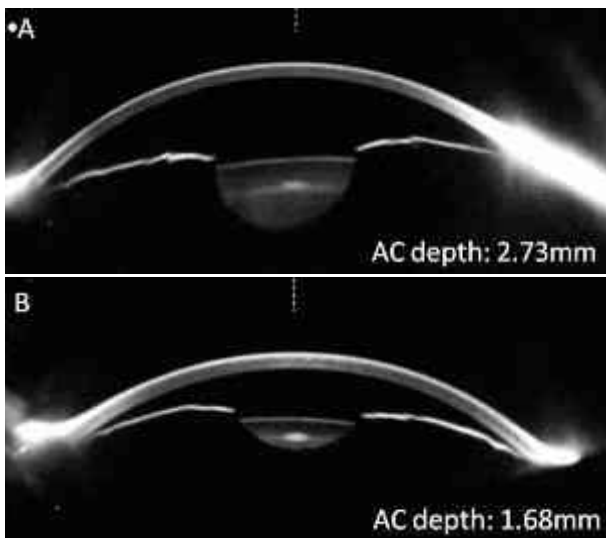


図 2 PENTACAM®による前眼部解析.

左眼に軽度浅前房化を認めるが, 隅角は閉塞していない(A: 右眼, B: 左眼).

現病歴: 2010年7月25日夕方より, テレビを見すぎで左目がひどく疲れた感じがしたため, 左眼のみタオルに包んだ氷で冷やし, 翌日近医を受診. バタメタゾンリン酸エステルナトリウム(リンデロン®)点眼, オフロキサシン(オフロキシ®)点眼を処方されたが改善なく, 毎日起床時に症状が増悪, 時間の経過とともに軽減する症状が続き, 29日に山口労災病院眼科を受診した. 視力は右1.0(矯正不能), 左0.6(1.0)と良好であり, 眼圧は右17 mmHg, 左20 mmHg(non contact tonometer: NCT)と左眼で軽度上昇を認めた. 眼球突出計で右16 mm, 左20 mm(Base 96 mm)と左眼球突出を認め, 頭部CTで明らかな上眼静脈の拡張は確認できなかったが症状より, 左頸動脈海綿静脈洞瘻を疑われ, 当院脳神経外科に紹介となった. 造影 magnetic resonance imaging(MRI)で眼静脈の拡張を認めなかったが強い副鼻腔炎の所見を認め, 眼窩周囲に炎症が及んだための症状であると考えられ耳鼻科を紹介受診したが, 眼球突出や充血の原因となっている可能性は否定的であり, 7月30日に当科紹介受診となった.

既往歴: 切除不能の胃癌と診断され, テガフル・ギメラシル・オテラシルカリウム(ティーエスワン®)内服中である. 食欲低下や栄養不良などの症状を認めない.

手術歴: 特記すべき事項なし.

家族歴: 特記すべき事項はない.

初診時所見: 視力は右0.9 p(1.5 p × +1.25 D cyl -0.50 D Ax 90°), 左1.2(矯正不能), 眼圧は右13 mmHg, 左16 mmHg(NCT)であった. 左上眼瞼に腫脹, 圧痛を認める. 複視を認めない. 左眼のみに強い結膜充血および結膜血管の著明な怒張と蛇行, 流涙を認めた. 眼脂はなかった(図1). 前眼部, 中間透光体に異常はなく, 眼底にも異常所見を認めなかった.

経過: 以上の所見より, 左眼の強膜炎および涙腺炎と診断し, 7月30日より抗菌薬内服と副腎皮質ステロイド薬(リンデロン®)点眼のうえ経過観察とすることにした. 眼内に炎症の所見を認めなかった. 眼圧は右12 mmHg, 左16 mmHg(NCT)と正常範囲内であった. 8月3日, 結膜腫脹は約半分に軽減し, 上眼瞼の圧痛は消失していた. しかし結膜充血や結膜血管の怒張は不変であり, 結膜浮腫を認めた. 眼圧は右11 mmHg, 左14 mmHg(NCT)と正常範囲内であった. 8月10日受診時には結膜浮腫・充血を認め, 眼圧は右11 mmHg, 左20 mmHg(NCT)と左眼に上昇を認めたが, 細隙灯顕微鏡検査および前眼部解析測定装置(PENTACAM®)を用いた解析では隅角に明らかな閉塞を認めなかった(図2). 聴診器による雑音の聴取はできなかったが, 頸動脈海綿静脈洞瘻を疑い, 眼球突出の対症療法としてオフロキサシン(タリビット®)眼軟膏点入のうえ眼帯で強制閉瞼とし, 脳外科での診断的血管造影検査を待つこととした. 8月11日, 当院脳外科にて診断的血管造影検査を施行したところ, 左上行咽頭動脈とACCに動脈瘻を認め(図3), ACC dAVFと診断した. 8月17日受診時, 結膜の浮腫は増悪しており, 眼圧は右13 mmHg, 左25 mmHg(NCT)で, 左眼の視力は0.06(矯正不能)であった. 中心フリッカ値は右41 Hz, 左30 Hzと, 左眼で中心フリッカ値の軽度低下を認めた. 8月18日, シェントポイントから下錐体静脈洞(inferior petrosal sinus: IPS)に流入する部分をコイル

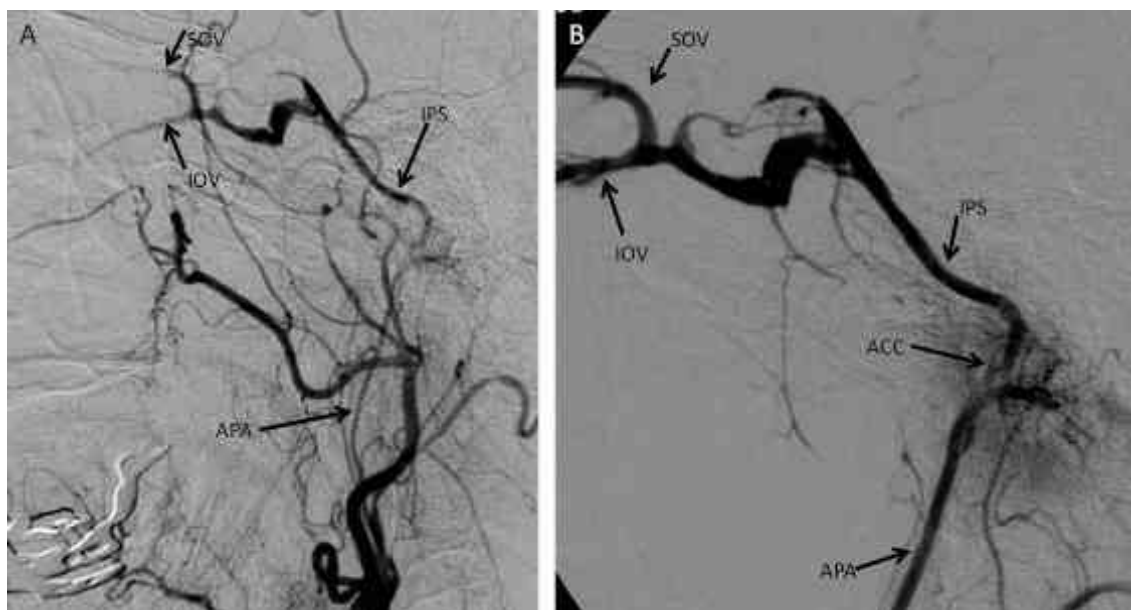


図 3 外頸動脈造影(A)と選択的上行咽頭動脈造影(B).

動脈造影で APA から ACC を経て IPS や眼静脈などの静脈系が描出されている。

APA : ascending pharyngeal artery (上行咽頭動脈), IPS : inferior petrosal sinus (下錐体静脈洞), SOV : superior ophthalmic vein (上眼静脈), IOV : inferior ophthalmic vein (下眼静脈), ACC : anterior condylar confluence.

左眼



図 4 治療 6 日目の前眼部写真。  
結膜浮腫および充血は消失している。

塞栓したところシャントは消失した。8月24日当科外来受診時、結膜の浮腫は軽快、眼圧も右 12 mmHg, 左 10 mmHg (NCT) と改善していた。左眼視力は 0.8 (1.0 p × +1.50 D cyl -0.50 × Ax 100°) と改善していた(図 4)。

### Ⅲ 考 按

頭蓋内の dAVF は硬膜に発生する異常な fistula を病態とする疾患である。Newton らは頭蓋内動静脈短絡性疾患の 12% に dAVF を認めると報告している<sup>1)</sup>。dAVF は多くは海綿静脈洞(44%), 横-S 状静脈洞部(38%)に発生し、頭蓋底に fistula を生じることが少ない<sup>2)</sup>。特に上行咽頭動脈を主に流入動脈とし、ACC に fistula を生じるものは近年認識されはじめ、症例報告が散見される<sup>3)~7)</sup>。ACC は頸静脈球の前内側壁に存在する憩室様の静脈構造であり、内頸静脈などのさまざまな静脈と静

脈網を形成する。また舌下神経管内を走行する anterior condylar vein (ACV) や頸静脈球、IPS などと吻合し<sup>3)</sup>、IPS を介して頸静脈や海綿静脈洞とも交通している。以前は hypoglossal canal dAVF や jugular vein dAVF と表現されていたため、ACC に fistula を生じるタイプの正確な症例数は不明であるが、全体からみるとまれな dAVF であるともいえる。診断には血管造影検査が必要とされるが、ACC 周囲の静脈組織が逆行性に造影されるため海綿静脈洞部 dAVF と誤診されることも多い<sup>8)</sup>。しかし海綿静脈洞部 dAVF とは外頸動脈撮影像において病側の上行咽頭動脈が ACC に流入していることで鑑別される。本症例では外頸動脈撮影像において上行咽頭動脈から ACC への流入を認めたため、ACC dAVF と診断した(図 3)。初診時 CT では眼静脈の明らかな拡張を確認できなかったが、CT スライス幅が 5 mm と厚いス

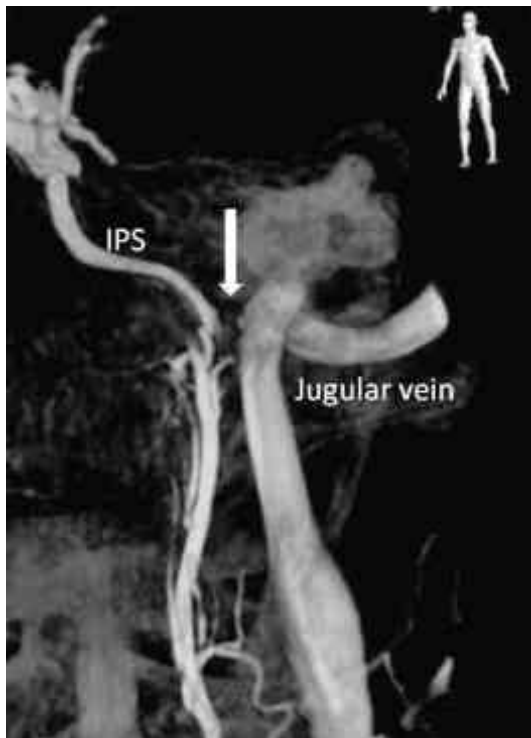


図 5 三次元血管造影.

IPS(下錐体静脈洞)と jugular vein(内頸静脈)の間に交通はない(白矢印).

ライスであったため、dAVF の評価は困難であったと考える。

一般に dAVF の症状には、頭痛や視力低下のような頭蓋内の静脈圧亢進による症状と、それぞれの dAVF の部位に特徴的な症状があり、今回のような結膜浮腫・充血・眼球突出は、海綿静脈洞部に dAVF を生じた場合に特徴的な症状であるとされている<sup>8)</sup>。一方、ACC に生じた病変では強い拍動性耳鳴りの頻度が非常に高いのが特徴であり、散見された症例報告ではほとんどが拍動性耳鳴りを初発症状としている。複視や眼球突出、視力障害などの海綿静脈洞部 dAVF と類似した症状を示すこともあるが<sup>7)</sup>、本症例のように眼症状から発症した ACC dAVF の報告は少なく、過去に 2 件報告されているのみである<sup>9)10)</sup>。

本症例で拍動性耳鳴りの症状が現れなかった理由はシャント血流が比較的少量であったためであると考えている。本症例では三次元血管造影で頸静脈と IPS に交通がないことが確認されている(図 5)。Satomi ら<sup>11)</sup>や Suh<sup>12)</sup>らの報告によると、症状を示さず経過観察された海綿静脈洞部 dAVF で静脈流出路の変化を認めた症例では、IPS などの後方流出路などの閉塞が起こり、眼静脈などから流出する前方流出型に変化していくことがあるという。これは dAVF が生じるストレスによって静脈側の血栓化や壁肥厚が促進されることで狭窄・閉塞性変化を来すためと考えられている。特に後方経路である

IPS の閉塞が前方流出路に先行するのは、前方経路である眼静脈と比較して IPS が硬膜に覆われた狭い間隙であり、拡張が制限され壁肥厚や血栓化が生じやすいためと推察される<sup>11)</sup>。本症例でも後方流出路の閉塞により血流は IPS を逆流し、海綿静脈洞を經由して眼静脈に流入したため眼症状が主症状として現れたものと考えられた。本症例は経過中、左眼一過性の視力低下を認めた。海綿静脈洞部 dAVF ではまれに静脈灌流障害により網膜中心静脈閉塞症を来すことがある<sup>13)</sup>。本症例でも dAVF で生じた眼静脈圧の上昇で静脈がうっ滞し、さらに後方流出路が閉塞したことでうっ滞が増強し、同様の病態が生じたと推察される。シャントポイントをコイル塞栓することで網膜循環が改善し、幸運なことに視力低下は一過性であったと考えられた。

利益相反：利益相反公表基準に該当なし

## 文 献

- 1) Newton TH, Cronqvist S: Involvement of dural arteries in intracranial arteriovenous malformations. *Radiology* 93: 1071—1078, 1969.
- 2) 里見淳一郎, 佐藤浩一: 脳硬膜動静脈瘻の疫学・成因. *Brain Nerve* 60: 883—886, 2008.
- 3) 佐々木哲郎, 長島 久, 佐藤大輔, 小山淳一, 本郷一博: Anterior condylar confluent 近傍硬膜動静脈瘻の 2 例. *JNET* 2: 212—216, 2008.
- 4) Ernst R, Bulas R, Tomsick T, van Loveren H, Aziz KA: Three cases of dural arteriovenous fistula of anterior condylar vein within the hypoglossal canal. *AJNR Am J Neuroradiol* 23: 1500—1508, 2002.
- 5) Abiko M, Ikawa F, Ohbayashi N, Mitsuhashi T, Ichinose N, Inagawa T: Endovascular treatment for dural arteriovenous fistula of the anterior condylar confluence involving the anterior condylar vein. A report of two cases. *Interv Neuroradiol* 14: 313—317, 2008.
- 6) 近藤やよい, 清末一路, 堀 雄三, 柏木淳之, 相良佳子, 田上秀一, 他: 骨内病変を伴った舌下神経管部硬膜動静脈瘻の一例. *JNET* 1: 31—35, 2007.
- 7) Manabe S, Satoh K, Matsubara S, Satomi J, Hanaoka M, Nagahiro S: Characteristics, diagnosis and treatment of hypoglossal canal dural arteriovenous fistula: report of nine cases. *Neuroradiology* 50: 715—721, 2008.
- 8) 桑原直也: 脳硬膜動静脈瘻の分類と診断. *Brain Nerve* 60: 887—895, 2008.
- 9) Kiyosue H, Tanoue S, Okahara M, Mori M, Mori H: Ocular symptoms associated with a dural arteriovenous fistula involving the hypoglossal canal: selective transvenous coil embolization. Case

- report. *J Neurosurg* 94 : 630—632, 2001.
- 10) **Miropolski V, da Costa LB, Marotta TR, Spears J** : Endovascular therapy of hypoglossal canal AVFs presenting with orbital symptoms. *Can J Neurol Sci* 36 : 745—750, 2009.
  - 11) **Satomi J, Satoh K, Matsubara S, Nakajima N, Nagahiro S** : Angiographic changes in venous drainage of cavernous sinus dural arteriovenous fistulae after palliative transarterial embolization or observational management : a proposed stage classification. *Neurosurgery* 56 : 494—502, 2005.
  - 12) **Suh DC, Lee JH, Kim SJ, Chung SJ, Choi CG, Kim HJ**, et al : New concept in cavernous sinus dural arteriovenous fistula : correlation with presenting symptom and venous drainage patterns. *Stroke* 36 : 1134—1139, 2005.
  - 13) 高野 誠, 倉田 彰, 吉田孝友, 前澤 浩, 平山 寿, 宇津木聡, 他 : 静脈還流障害により網膜中心静脈血栓症をきたした特発性頸動脈海綿静脈洞瘻の 2 症例について. *日本脳神経血管内手術研究会* 8 : 75—78, 1993.
-