

## 脈絡膜剝離を合併した特発性内頸動脈海綿静脈洞瘻の一例

山田 美佐\*, 池田 尚弘\*, 三村 治\*, 前田 行雄\*\*

\*兵庫医科大学眼科学教室, \*\*兵庫医科大学脳神経外科学教室

### 要 約

本邦ではいまだ報告をみない特発性内頸動脈海綿静脈洞瘻(CCF)に脈絡膜剝離を合併した症例を報告した。本症例では患眼で健眼より眼圧は高く、また CCF に特徴的とされるトノグラフィーでの脈波の増大が認められなかった。CCF における脈絡膜剝離の発生機序として、静脈圧の上昇により渦静脈の還流が障害され、脈絡膜内で強いうっ血が起こることによるものと考えた。また、脈絡膜剝離のため、脈絡膜血管床が増大することにより、トノグラフィーにおいて患眼での脈波の低下がみられたと考えられた。この両者の合併は病態生理学的に充分起こりうるものであり、今後注意深い観察により症例の増加と脈絡膜剝離の成立機序の解明が期待される。(日眼会誌 95:704-709, 1991)

キーワード: 特発性内頸動脈海綿静脈洞瘻, 脈絡膜剝離, 脈波, 脈絡膜循環, 高眼圧

## Choroidal Detachment Associated with Spontaneous Carotid Cavernous Fistula

Misa Yamada\*, Naohiro Ikeda\*, Osamu Mimura\* and Yukio Maeda\*\*

\*Department of Ophthalmology, Hyogo College of Medicine

\*\*Department of Neurosurgery, Hyogo College of Medicine

### Abstract

A rare case is presented in which an 87-year-old woman with choroidal detachment was subsequently found to have an atypical carotid cavernous fistula (CCF). In this case, the intraocular pressure of the affected eye was higher than that of the contralateral eye. However, tonography showed no increased ocular pulse (amplitude of Schiøtz reading) of the affected eye, which is characteristic of CCF. Choroidal detachment accompanied with CCF is thought to be a result of severe choroidal hemostasis and transudation caused by increased episcleral venous pressure. Furthermore, the enlarged perichoroidal space due to choroidal detachment reduced the ocular pulse of the affected eye. This combination may not be as rare as it has been previously reported. Attention to these symptoms can provide clues to the elucidation of the pathogenesis of choroidal detachment. (*Acta Soc Ophthalmol Jpn* 95: 704-709, 1991)

**Key words:** Spontaneous carotid cavernous fistula, Choroidal detachment, Ocular pulse, Choroidal circulation, Ocular hypertension

別刷請求先: 663 西宮市武庫川町1-1 兵庫医科大学眼科学教室 山田 美佐  
(平成3年1月11日受付, 平成3年3月22日改訂受理)

Reprint requests to: Misa Yamada, M.D. Department of Ophthalmology, Hyogo College of Medicine,  
1-1 Mukogawa-cho, Nishinomiya 663, Japan

(Received January 11, 1991 and accepted in revised form March 22, 1991)

## I 緒 言

特発性頸動脈海綿静脈洞瘻 (carotid cavernous fistula: 以下 CCF と略記する) は内頸または外頸動脈の髄膜枝である硬膜動脈と、海綿静脈洞または硬膜静脈との間の短絡を形成し、そのために種々の臨床症状を起こすものである。以前は外傷後に拍動性眼球突出や血管雑音などを呈する短絡血流量の多いものが典型的 CCF とされていたが、最近になり充血 (red eye) を示すものの中に短絡血流量の少ないこの特発性 CCF が含まれることが強調され、red-eyed shunt syndrome の名も冠されている<sup>1)</sup>。特発性 CCF の眼症状としては、充血以外にもトノグラフィーによる脈波の増大<sup>2)3)</sup>、上眼静脈の拡張<sup>4)</sup>、視神経鞘や外眼筋の肥厚など多彩な症状があげられている<sup>4)</sup>。また最近 CCF に脈絡膜剥離を合併した例が、欧米で相次いで報告されているが<sup>5)~8)</sup>、本邦では未だその報告をみない。今回著者は CCF に脈絡膜剥離を合併し、CCF では脈波が増大するとされるトノグラフィーではむしろ脈波の低下していた症例を経験したので、臨床症状を報告するとともに、その症状の発現機転について考察する。

## II 症 例

症例：87歳，女性。

主訴：左球結膜充血。

現病歴：1989年8月初めより左球結膜充血および眼球突出が出現したが、放置していた。9月頃よりさらに左眼視力低下も出現し、球結膜充血も増悪してきたため近医眼科を受診し、9月28日兵庫医科大学病院眼科に紹介された。

既往歴：50歳頃より高血圧を指摘されている。また接触性皮膚炎にて当院皮膚科に通院中である。

初診時眼科の所見：視力右0.3 (n.c.)、左0.2 (n.c.)。眼位は正位で眼球運動に制限はみられなかったが、眼球突出度 (Hertel) は右13mm、左18mmと左右差を認めた。前眼部では左球結膜血管の著明な怒張と蛇行を認めた (図1)。瞳孔は左右円形同大であるが、右眼の間接および左眼の直接対光反応は遅鈍かつ不十分であった。中間透光体では両眼とも中等度の核性白内障を認めた。右眼底には高血圧性の変化のみで他に異常はみられなかったが、左眼底には鼻側周辺から下方周辺にかけて色調の暗い半球状の隆起が認められ、脈絡膜剥離と診断された (図2)。また左眼網膜静脈は軽度の怒張を認め、網膜上には散在する点状出血も認め



図1 初診時の左眼前眼部写真。著明な球結膜充血を認める。

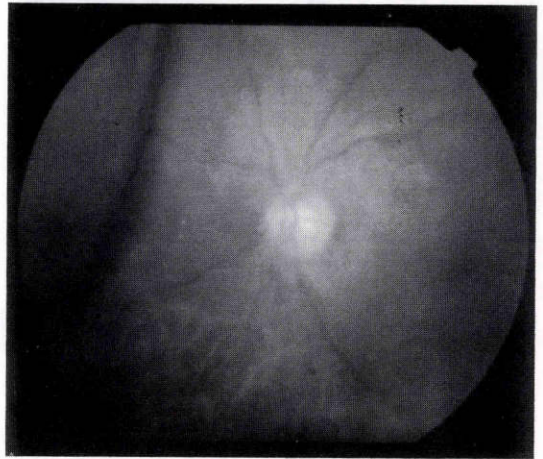


図2 初診時の左眼眼底写真。網膜血管の軽度の怒張蛇行と脈絡膜剥離をみとめた。

られた。眼圧は右11mmHg、左18mmHgであり、トノグラフィー検査では左眼脈波の低下が認められた (図3)。超音波検査では左眼脈絡膜剥離が描出されたが、強膜の肥厚は確認できず、さらに球後に上眼静脈の拡張を認めた (図4)。

神経放射線学的検査：頭部造影 CT で、左上眼静脈の拡張がみられたが、海綿静脈洞の拡大は認められなかった (図5)。MRI でも上眼静脈の拡張が確認された (図6)。

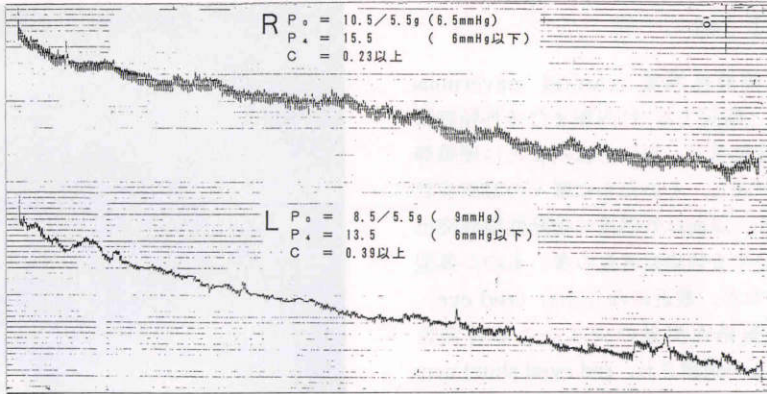


図3 初診時のトノグラフィー。左眼で脈波の低下が認められた。

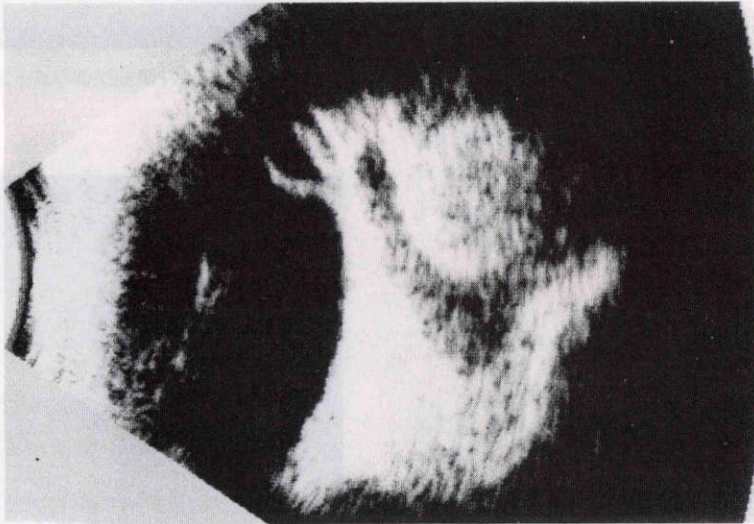


図4 左眼超音波所見。脈絡膜剝離と上眼静脈の拡張を認める。

経過：上記の所見より左 CCF と診断し、当院脳神経外科に紹介した。脳神経外科ではアレルギー体質であること、高齢であること、また症状が比較的軽度であることなどから血管造影は施行せず、自己 Matas 法にて経過観察を行った。眼底精査のため当科を再診した10月19日には、左眼の脈絡膜剝離は消失していた。しかし11月2日、左側の眼瞼下垂と眼球運動障害が出現し、眼科を再受診した。受診時の眼球運動は、左眼の内転および下転が高度に障害され、また上転障害も軽度に認められた。左動眼神経麻痺と診断し、脳神経外科に緊急入院のうえ血管造影を施行したところ、左側の海綿静脈洞の早期よりの造影は認められなかった。その後、脳外科入院中に左側の眼瞼下垂や球結膜

充血は自然に消退し、11月16日退院、1990年1月12日当科受診時には、眼球運動には制限はみられず、左球結膜充血も認められなかった。また眼圧も右14 mmHg、左15 mmHg と左右差は消失しており、自然緩解したものと考えられた。

### III 考 按

海綿静脈洞は脳硬膜の2葉の間隙によって形成された静脈管で、下垂体および蝶形骨体部の両側面に位置し、上眼窩裂から側頭骨岩様部の先端にまでびている<sup>9)</sup>。CCF は主として内頸動脈(時に外頸動脈)と、この海綿静脈洞との短絡により生ずる疾患である。この CCF には内頸動脈と海綿静脈洞が直接交通する典型



図5 頭部 CT. 左上眼静脈の拡張を認める.



図6 頭部 MRI. 左上眼静脈の拡張を認めた.

例(直接型)と、内頸・外頸動脈の硬膜枝である硬膜動脈と海绵静脈洞が交通する特発性(非典型)CCFがある。本例のような特発性CCFは、外傷性CCFと比べて短絡血流量が少ないため症状に乏しく、見逃されやすい疾患であるが、頻度的にははるかに多い<sup>1)</sup>。この特発性CCFは最近red-eyed shunt syndromeとして眼科領域で注目され、臨床報告も増加している。これはCT, MRI, Bモードエコー等の画像診断の進歩により、上眼静脈の拡張が描出されるようになり、非侵襲的な確定が容易になったためと思われる。またこれら画像診断以外にも眼科外来で簡単に行える補助診断法としてトノグラフィーによる脈波の上昇<sup>2)</sup>やシュレム管内の血液の逆流<sup>10)</sup>などが注目されている。特にトノグラフィーによる患眼の脈波の上昇は健眼の約4倍といわれ、CCFの診断ならびに外科的治療の効果判定に有用とされている<sup>2)</sup>。これらの徴候はいずれも上強膜静脈圧の上昇にもとづく現象であるが、トノグラフィーで脈波の増大するメカニズムは、上強膜静脈のうっ血により、流速速度が低下し、Bernoulliの法則に基づき脈波が増大すると考えられている<sup>3)</sup>。

これに対して今回みられた脈絡膜剥離の成因は以下のように考えられる。脈絡膜の毛細血管は網膜血管とは異なり、内皮細胞と基底膜だけが完全で、pericyteは血管の全周を取り巻いていないし、特別な機構として有窓型内皮細胞がある。しかし、正常では眼内圧と毛細管内血圧と脈絡膜の浸透圧が平衡しているため、血管から血管外腔への漏出液の貯留は起こらない。しかしこのうち1つまたは2つが変化すると脈絡膜腔への漏出液が増加する<sup>8)</sup>。多くの脈絡膜剥離は低眼圧で発生するが、これは上強膜静脈圧(平均9mmHg<sup>11)</sup>)よりも眼圧が低下するため渦静脈を通して眼外へ出ていく血液循環に抵抗が加わり、このためのうっ血状態から脈絡膜血管網からの血漿成分の漏出が起こると考えられる。CCFでは眼圧は正常かむしろ上昇することが多いが、前述したように上強膜静脈圧も著明に上昇する(平均18.4mmHg<sup>11)</sup>)ため、これが渦静脈を経て脈絡膜レベルでの静脈圧の上昇につながり、血管内から血管外腔への急速な漏出を招き、網膜剥離あるいは脈絡膜剥離になると考えられる。実際、CCFで脈絡膜循環が異常になることは蛍光眼底撮影でも証明されており<sup>6)</sup>、この原因としてやはり静脈圧の上昇、平均動脈圧の低下・組織の低酸素状態があげられている<sup>6)</sup>。今後術後の低眼圧に続発する脈絡膜剥離以外に、正常あるいは高眼圧での脈絡膜剥離をみた際には、上強膜静脈圧

の上昇、特に特発性CCFを念頭におく必要があると考えた。そしてこのような脈絡膜剥離は、保存的に経過を観察しても自然に消退することが多いため、uveal effusionの場合に効果のある強膜部分切除術や強膜切開術<sup>11)</sup><sup>12)</sup>はむしろ禁忌であり、この鑑別も超音波検査やCTなどで念入りに行う必要があることを強調したい。

さて本症例でCCFがあるにもかかわらず患眼で脈波が低下していた理由は以下のように考えられる。脈波は、主として脈絡膜循環を反映していると考えられるが<sup>13)</sup>、本症例では既に脈絡膜剥離が発生しており、この脈絡膜剥離のため脈絡膜腔に多量の血漿成分が貯留し、脈絡膜血管床が増加した状態となっていたと考えられる。したがって渦静脈には動脈圧が直接反映されていても、この脈絡膜血管床の増加のため、脈絡膜剥離が緩衝となって、眼圧には動脈圧が反映されず、その結果として脈波が健眼よりも低下したと考える。

最後に、本症例のように特発性CCFに脈絡膜剥離を伴う症例は本邦では未だ報告をみない。しかしこの両者の合併は病態生理学的には当然起こりうるものであり、最近の欧米の合併の比率<sup>9)</sup>からみてもわが国では今まで看過されてきた可能性が高い。すなわち脈絡膜剥離は眼科的に診断が容易であっても特発性CCFが診断が不能であったためではないかと思われる。事実、欧米の文献でも脈絡膜剥離の上強膜炎などとの合併が報告されており<sup>14)</sup>、これはむしろ上強膜炎ではなく特発性CCFとの合併と理解される<sup>9)</sup>。今後低眼圧を伴わない脈絡膜剥離をみた際には必ず本症をも考慮すべきことを再強調したい。

稿を終るにあたり、御校閲を賜りました下奥 仁教授に深謝致します。

#### 文 献

- 1) Phelps CD, Thompson HS, Ossoinig KC: The diagnosis and prognosis of atypical carotid-cavernous fistula (red-eyed shunt syndrome). *Am J Ophthalmol* 93: 423-436, 1982.
- 2) Galin MA, Harris L: The ocular pulse in carotid-cavernous sinus fistula. *Am J Ophthalmol* 61: 1472-1479, 1966.
- 3) 岡本美佳, 盛 隆興, 宮崎茂雄, 他: トノグラフィー検査が診断に有用であった非典型的内頸動脈海綿静脈洞瘻の5例. *臨眼* 41: 977-980, 1987.
- 4) 木村 実, 三島宣彦, 幸田富士子, 他: 特発性頸動脈海綿静脈洞瘻の4症例. *臨眼* 44: 557-560, 1990.
- 5) Guerry D-P III, Harbison JW, Wiesinger H:

- Bilateral choroidal detachment and fluctuating proptosis secondary to bilateral dural arteriovenous fistulas treated with transcranial orbital decompression with resolution: Report of a case. *Tr Am Ophthalmol Soc* 73: 64-73, 1975.
- 6) **Klein R, Meyers SM, Smith JL, et al**: Abnormal choroidal circulation: Association with arteriovenous fistula in the cavernous sinus area. *Arch Ophthalmol* 96: 1370-1373, 1978.
- 7) **Mazzeo V, Galli G, Signori D, et al**: Spontaneous choroidal detachment and 'red-eyed shunt syndrome': Two clinical entities with the same cause? *Int Ophthalmol* 8: 129-138, 1985.
- 8) **Jorgensen JS, Guthoff R**: Ophthalmoscopic findings in spontaneous carotid cavernous fistula: An analysis of 20 patients. *Graefe's Arch Clin Exp Ophthalmol* 226: 34-36, 1988.
- 9) 治村隆文: 核および核下性眼球運動障害—海綿静脈洞病変によるもの. 下奥 仁, 山本 節編, 臨床神経眼科学, 東京, メディカル葵出版, 242-246, 1988.
- 10) 川畑篤彦, 内田 璞: 特発性非定型的頸動脈海綿静脈洞瘻の3例. *眼紀* 34: 780-786, 1983.
- 11) **Gass JDM**: Uveal effusion syndrome: A new hypothesis concerning pathogenesis and technique of surgical treatment. *Retina* 3: 159-163, 1983.
- 12) **Casswell AG, Gregor ZJ, Bird AC**: The surgical management of uveal effusion syndrome. *Eye* 1: 115-119, 1987.
- 13) 阪本寿美, 卯月かほる, 玉田玲子, 他: 眼球脈波に影響する因子について—網膜剝離手術による変化—.*眼紀* 35: 2125-2129, 1984.
- 14) **Scheie HG, Morse PH**: Shallow anterior chamber as a sign of nonsurgical choroidal detachment. *Ann Ophthalmol* 6: 317-319, 1974.
-