

## 症例報告

## 片頭痛様頭痛に対しトリプタンの効果がみられた 片頭痛の既往のある海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の69歳女性

齋木 美佳<sup>1)</sup> 鈴木 圭輔<sup>1)\*</sup> 竹川 英宏<sup>1)2)</sup> 金谷 英明<sup>3)</sup>  
河本 俊介<sup>3)</sup> 中村 利生<sup>4)</sup> 平田 幸一<sup>1)</sup>

要旨：症例は前兆のない片頭痛の既往のある69歳女性。右眼窩部痛と4時間以上持続する通常と同部位の吐き気を伴う右前頭部拍動性頭痛が出現した。前医にてエレクトリプタンを処方され頭痛は改善していたが、1か月後同部位の激しい頭痛が出現し当科に入院した。神経学的所見に異常はなかった。頭部MR angiographyで海綿静脈洞に異常信号をみとめた。脳血管撮影にて海綿静脈洞部に還流があり海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻(cavernous sinus dural arteriovenous fistula; CS-DAVF)と診断した。経静脈的塞栓術を施行し5日後に頭痛は改善した。脳神経麻痺を伴わず片頭痛様頭痛のみをきたし、トリプタンの効果がある場合、CS-DAVFの可能性に注意する必要がある。(臨床神経 2018;58:188-192)

Key words：海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻、トリプタン、片頭痛

## はじめに

内頸・外頸動脈から直接的にまたはその分枝を介した海綿静脈洞部とのシャント性疾患である海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻(cavernous sinus dural arteriovenous fistula; CS-DAVF)や内頸動脈海綿静脈洞瘻(carotid-cavernous fistula; CCF)では、眼窩周囲の痛みに加え、結膜浮腫、眼球突出をきたし、眼窩部血管雑音が聴取される。しかし眼症状を伴わず、頭痛が主症状の場合にはCCFやCS-DAVFの臨床診断は困難である<sup>1)~5)</sup>。頭痛が優位症状となり、トリプタンの効果がみられたCCFやCS-DAVFの症例も稀ながら報告されている<sup>1)~4)</sup>。我々は眼症状を伴わず頭痛で発症し、トリプタンの効果が一時的にみられた片頭痛の既往を有するCS-DAVFの症例を経験したため、文献的考察を含めて報告する。

## 症 例

症例：69歳女性

主訴：右前頭部痛、右眼の奥の痛み、吐き気  
既往歴：30歳から前兆のない片頭痛。脂質異常症。  
家族歴：母親に片頭痛がある。  
嗜好：喫煙歴なし。飲酒：ビールコップ1杯/日。

現病歴：2015年7月下旬より、数時間で軽快する右眼の羞明感と右眼の奥の痛みが出現し、以前よりある片頭痛と同部位の4時間以上持続する右前頭部拍動性頭痛も出現した。頭痛発作の頻度は1日数回であった。前医を受診し、片頭痛発作の疑いでエレクトリプタン20mgを処方され、服用後1時間以内で頭痛は軽快した。約1か月後17時頃から激しい右前頭部拍動性頭痛、右眼の奥の痛み、吐き気が出現し、当院へ救急搬送となった。

入院時現症：身長147cm、体重48.5kg、体温35.7°C、血圧139/65mmHgで左右差なし。脈拍80/分・整。一般身体所見：眼球突出や眼球圧痛はなく、眼球結膜充血や浮腫は認めなかった。胸腹部に異常はなかった。眼窩部や頸部に血管雑音は聴取しなかった。側頭動脈怒張や圧痛なし。右眼の奥の痛みがあり、右前頭部を中心とした拍動性頭痛、光・音過敏があり、吐き気を認めた。神経学的所見：意識清明で、脳神経領域では瞳孔4mm/4mm、左右同大、対光反射は両側迅速であった。眼球運動制限はなく、顔面感覚は正常、顔面神経麻痺も認めなかった。運動系、小脳系に異常はなかった。腱反射は左右差なく正常で病的反射は認めなかった。髄膜刺激症候はみられなかった。単純・造影頭部CTでは異常はなかった。血液検査ではWBC 19,300/ $\mu$ l、CRP 0.02 mg/dlと軽度炎症反応の増加およびD-dimer値の増加を認めた。片頭痛発作と

\*Corresponding author: 獨協医科大学神経内科〔〒321-0293 栃木県下都賀郡壬生町北小林880〕

<sup>1)</sup> 獨協医科大学神経内科

<sup>2)</sup> 獨協医科大学病院超音波センター

<sup>3)</sup> 獨協医科大学脳神経外科

<sup>4)</sup> リハビリテーション天草病院脳神経内科

(Received October 27, 2017; Accepted December 31, 2017; Published online in J-STAGE on February 28, 2018)

doi: 10.5692/clinicalneuroi.cn-001118

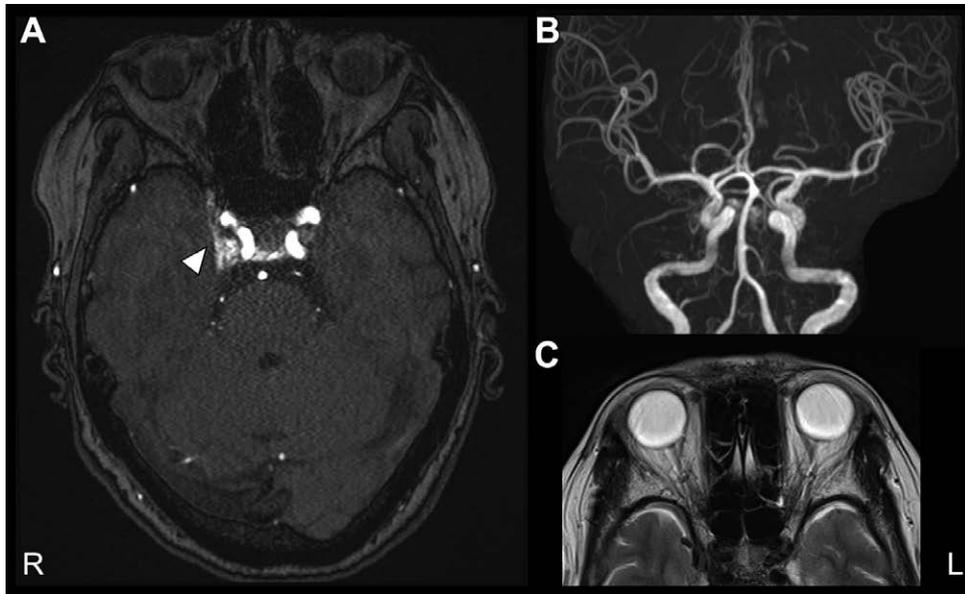


Fig.1 MR angiography and MRI findings of the patient.

MR angiography source image (A, arrowhead) and MR angiography (B) show abnormal intensities adjacent to the cavernous sinus and internal carotid arteries. T<sub>2</sub>-weighted image shows no apparent enlargement of superior ophthalmic veins (C).

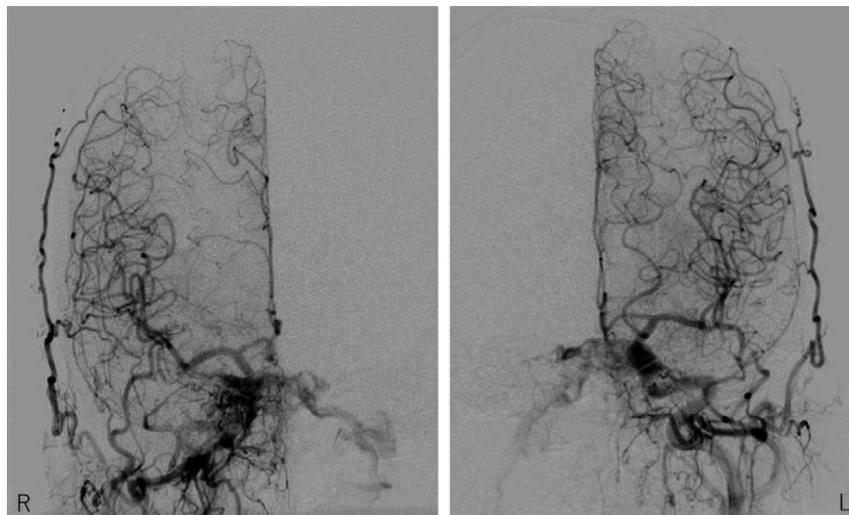


Fig. 2 Cerebral angiographic findings of the patient.

Cerebral angiography reveals abnormal vascular shunts from the branches of the internal and external carotid arteries to the cavernous sinus.

してスマトリプタン 3 mg 皮下注を施行したところ、吐き気は残存したが頭痛は徐々に改善し、6 時間後には消失した。入院翌日に施行した MRI では脳内に異常信号は明らかではなかったが、MR angiography および MR angiography 元画像において内頸動脈から海綿静脈洞部近傍に異常信号域を認めた (Fig. 1A, B)。上眼静脈の腫脹は明らかでなかった (Fig. 1C)。頸動脈エコーでは総頸・内頸動脈に高度狭窄病変はなかったが、右外頸動脈の抵抗係数 (Resistance Index; RI) は 0.55 と低下し、内頸動脈との比も 0.91 と増加しており、右側で硬膜動静脈瘻を疑った<sup>6)</sup>。また、左外頸動脈の RI も 0.68 と低下

しており、左側の硬膜動静脈瘻も示唆された。脳血管撮影の結果、両側外頸・内頸動脈双方の分枝から海綿静脈洞への異常血管の流入が確認され (Fig. 2)、Barrow 分類 type D と診断した。右下錐体静脈洞にカテーテルを留置し、海綿間静脈洞および右上錐体静脈洞部にコイル塞栓術を施行し 5 日後に頭痛は改善した。拍動性耳鳴り、眼筋麻痺はなく、朝、咳嗽時、身体を屈めることで悪化する特徴の頭痛はなかったが、今回の頭痛発作が CS-DAVF の診断契機となったこと、頭痛は CS-DAVF の治療により有意に改善したことから、国際頭痛分類第 3 版 beta 版における DAVF による頭痛と診断した<sup>7)</sup>。

Table 1 Patients with CS-DAVF presenting with headache as the chief complaint.

No.	Age/ sex	Headache duration and frequency	Past medical history	Headache characteristics	Headache locations	Nausea and/or vomiting	Aura	Photophobia/ phonophobia	Ophthalmoparesis	Chemosis/ proptosis	The effects of triptan	Treatment	Clinical course of headache
1 <sup>1)</sup>	70/F	3 weeks, continuously	Diabetes Mellitus	Tightening	R temporal region	+	-	-	+	-	NA	Conservative treatment	Disappeared
2 <sup>1)</sup>	76/F	25 days, continuously	Herpes zoster	Throbbing	R temporal region	+	-	-	+	-	NA	Embolization	Disappeared
3 <sup>1)</sup>	55/F	Several weeks, continuously	NA	Pulsating	R orbital area	+	-	-	+	-	Partial improvement	Embolization	NA
4 <sup>1)</sup>	47/F	3-4 times a day for 4 months	NA	Throbbing	L temporal region	+	-	-	-	-	Improved within several hours	Embolization	Disappeared
5 <sup>3)</sup>	79/F	Several hours	Unremarkable	Throbbing	R ophthalmic nerve area	-	-	-	Diplopia	-	Markedly effective	Embolization, pregabalin	Once paradoxical worsening occurred but disappeared 1 month later
6 <sup>2)</sup>	61/F	3 months	NA	Mild	L orbital area	-	-	-	-	+	Effective	Embolization	Disappeared
7 <sup>2)</sup>	68/F	15 days	NA	NA	R temporal region	-	-	-	Double vision	-	NA	Manual compression of the bilateral carotid arteries at the neck by the patient	Disappeared
8 <sup>2)</sup>	74/F	5 months	NA	NA	R temporal region	-	-	-	Double vision	+	NA	Embolization	Disappeared
9 (Present case)	69/F	Several times a day for 1 month. Each attack lasted several hours.	Migraine	Throbbing	R frontal region	+	-	+	-	-	Improved within several hours	Embolization	Disappeared

CS-DAVF = cavernous sinus dural arteriovenous fistula, NA = not available, R = right, L = left.

## 考 察

我々は片頭痛の既往があり CS-DAVF を併発した 69 歳女性例を経験した。CS-CCF は Barrow の分類<sup>8)9)</sup>によると内頸動脈から直接海綿静脈内に異常血管が流入する直接型 CCF (type A) と、内頸や外頸動脈の分枝から間接的に海綿静脈に流入する間接型 CCF (CS-DAVF) に分類される。間接型 CCF はさらに内頸動脈の分枝から海綿静脈に流入する type B, 外頸動脈の分枝より海綿静脈に流入する type C, 内頸及び外頸動脈の分枝から海綿静脈洞に流入する type D に分類される。本症例は脳血管撮影の結果 type D に相当すると考えられた。間接型 CCF では頭痛は 34%, 眼球突出は 81%, 結膜浮腫は 87%, 眼窩部血管雑音は 49% に認められる<sup>8)</sup>。CCF に比べて CS-DAVF (間接型 CCF) は発症が緩徐であり, CS-DAVF において後方流出路のシャントでは下錐体静脈洞や海綿静脈洞部の虚血や静脈うっ滞により脳神経麻痺を呈し, 前方流出路のシャントでは上眼静脈のうっ滞により結膜充血が生じる<sup>9)~11)</sup>。本症例では頭痛のみの臨床症状であり, その原因として後方流出路のシャント血流が主である間接型 CCF であったことが考えられた。

本症例の約 1 か月間にわたる頭痛は以前からある片頭痛と類似する性状であり, DAVF の拍動性耳鳴りや眼筋麻痺などの随伴症状は認めなかったが, 今回の頭痛が CS-DAVF の診断契機となり, DAVF の治療により頭痛が改善したことから, 国際頭痛分類第 3 版 beta 版における DAVF による頭痛の診断基準を満たした。本症例では片頭痛の既往があったが, 今回の頭痛は通常より高頻度であり, 重症度が高かった。このことから, 片頭痛の性状は以前と同様であっても頻度や重症度に変化がみられた頭痛が続く場合には二次性頭痛の検索を進めることが重要である。

CS-DAVF や CS-CCF の頭痛には静脈還流の障害による頭蓋内圧亢進やシャント血流増加による三叉神経刺激が考えられている<sup>2)~5)8)</sup>。Table 1 に頭痛を主症状とした CS-DAVF の 9 症例を示す<sup>1)~5)</sup>。年齢は 47 歳~79 歳 (中央値 69 歳) であり, 全例女性であった。全例 CS-DAVF (間接型 CCF) であり直接型 CCF の症例はいなかった。眼筋麻痺や複視は 9 例中 6 例 (66.6%), 結膜浮腫や眼球突出は 2 例 (22.2%) にみられた。頭痛の罹病期間は 15 日~5 か月, 頭痛の特徴も持続性の症例や日に数回と様々であった。拍動性頭痛は本症例を含めて 4 例 (44.4%) にみられ, 圧迫性頭痛が 2 例 (22.2%) であった。7 例 (77.8%) にコイル塞栓術が施行され, そのうち 5 例 (71.4%) に著明な改善がみられた。トリプタンは 5 例に使用され全例において頭痛の軽減に効果があった。

片頭痛の治療に用いられるトリプタンは 5HT<sub>1B</sub> 受容体を介して外頸動脈および海綿静脈洞部の内頸動脈を選択的に収縮させることが報告されている<sup>12)</sup>。Osaka ら<sup>3)</sup>は拍動性頭痛を呈し, トリプタンが頭痛に効果的であった CS-DAVF の症例を報告し, その機序について海綿静脈洞部のシャント血流の減少や三叉神経の一次シナプスにおける疼痛シグナル伝達の抑制を考察している。本症例も同様にトリプタンの効果が

得られており, トリプタンによるシャント血流減少による効果が推察された。Yamada ら<sup>4)</sup>の報告においても CS-DAVF による片頭痛様の頭痛にはトリプタンが有効であった。このことからトリプタンの効果のみでは片頭痛様の頭痛を呈する CS-DAVF を含めた二次性頭痛を否定できないことに注意を要する。

前兆のない片頭痛の既往があり, トリプタンが頭痛に対して有効であった CS-DAVF の症例を報告した。脳神経麻痺, 眼球突出, 結膜浮腫や血管雑音を認めず, 頭痛のみを訴えトリプタンの効果がある場合, CS-DAVF を片頭痛発作との鑑別として考慮する必要がある。

本論文の要旨は第 215 回日本神経学会関東・甲信越地方会 (2015 年 12 月 5 日) にて発表した。

※本論文に関連し, 開示すべき COI 状態にある企業・組織や団体。  
平田幸一: 講演料: エーザイ, ファイザー製薬。

## 文 献

- 1) Ikeda K, Deguchi K, Tsukaguchi M, et al. Absence of orbito-ocular signs in dural carotid-cavernous sinus fistula with a prominent anterior venous drainage. *J Neurol Sci* 2005;236:81-84.
- 2) Nomura M, Mori K, Tamase A, et al. Cavernous sinus dural arteriovenous fistula patients presenting with headache as an initial symptom. *J Clin Med Res* 2016;8:342-345.
- 3) Osaka M, Shibata M, Oki K, et al. Clinical utility of triptans in the management of headache attributed to dural arteriovenous fistula involving the cavernous sinus. *J Neurol Sci* 2015;349:260-261.
- 4) Yamada SM, Masahira N, Shimizu K. A migraine-like headache induced by carotid-cavernous fistula. *Headache* 2007;47:289-293.
- 5) 石崎雅俊, 稲富雄一郎, 米原敏郎. 頭痛のみを初発症状とした海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻の 2 例. *臨床神経* 2006;46:501-504.
- 6) Tsai LK, Yeh SJ, Chen YC, et al. Screen for intracranial dural arteriovenous fistulae with carotid duplex sonography. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2009;80:1225-1229.
- 7) 日本頭痛学会. 国際頭痛分類. 第 3 版 beta 版. 東京: 医学書院; 2014.
- 8) Ellis JA, Goldstein H, Connolly ES Jr, et al. Carotid-cavernous fistulas. *Neurosurg Focus* 2012;32:E9.
- 9) Barrow DL, Spector RH, Braun IF, et al. Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. *J Neurosurg* 1985;62:248-256.
- 10) Acierno MD, Trobe JD, Cornblath WT, et al. Painful oculomotor palsy caused by posterior-draining dural carotid cavernous fistulas. *Arch Ophthalmol* 1995;113:1045-1049.
- 11) Leonard TJ, Moseley IF, Sanders MD. Ophthalmoplegia in carotid cavernous sinus fistula. *Br J Ophthalmol* 1984;68:128-134.
- 12) Amin FM, Asghar MS, Hougaard A, et al. Magnetic resonance angiography of intracranial and extracranial arteries in patients with spontaneous migraine without aura: a cross-sectional study. *Lancet Neurol* 2013;12:454-461.

## Abstract

**Triptan-responsive migraine-like headache caused by cavernous sinus dural arteriovenous fistula in a 69-year-old woman with a history of migraine without aura**

Mika Saiki, M.D.<sup>1)</sup>, Keisuke Suzuki, M.D., Ph.D.<sup>1)</sup>, Hidehiro Takekawa, M.D., Ph.D.<sup>1)2)</sup>, Hideaki Kanaya, M.D., Ph.D.<sup>3)</sup>, Shunsuke Kawamoto, M.D., Ph.D.<sup>3)</sup>, Toshiki Nakamura, M.D., Ph.D.<sup>4)</sup> and Koichi Hirata, M.D., Ph.D.<sup>1)</sup>

<sup>1)</sup>Department of Neurology, Dokkyo Medical University

<sup>2)</sup>Center of Medical Ultrasonics, Dokkyo Medical University Hospital

<sup>3)</sup>Department of Neurosurgery, Dokkyo Medical University

<sup>4)</sup>Department of Neurology, Rehabilitation Amakusa Hospital

A 69-year-old woman with a previous history of migraine without aura developed throbbing headache in the right frontal region accompanied by nausea, lasting more than 4 hours a day. The headache intensity was more severe than that of usual her migraine headaches. Administration of eletriptan in the previous hospital improved her headaches. However, one month later the patient experienced more intense headaches in the same region and then was referred to our hospital. MR angiography showed abnormal signal intensities in the cavernous sinus. Cerebral angiography revealed blood reflux to the cavernous sinus, leading to diagnosis of cavernous sinus dural arteriovenous fistula. Transvenous embolization of cavernous sinus dural arteriovenous fistula was performed, which resulted in resolution of the patient's headache. We should be aware that patients with cavernous sinus dural arteriovenous fistula can manifest migraine-like headaches without being accompanied by cranial nerve palsies.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2018;58:188-192)

**Key words:** cavernous sinus dural arteriovenous fistula, triptan, migraine

---