

# 永存三叉动脉-海绵窦瘘可解脱弹簧圈结合 Onyx 胶栓塞治疗一例

施妙妙 何爽

【关键词】 颈动脉海绵窦瘘； 栓塞，治疗性； 黏着剂； 病例报告

【Key words】 Carotid-cavernous sinus fistula； Embolization, therapeutic； Adhesives； Case reports

## Embolizing persistent trigeminal artery-cavernous fistula by detachable coil system and Onyx glue: one case report

SHI Miao-miao<sup>1</sup>, HE Shuang<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Department of Neurology, Nantong Third People's Hospital, Nantong 226000, Jiangsu, China

<sup>2</sup>Department of Neurology, Affiliated Hospital of Nantong University, Nantong 226001, Jiangsu, China

SHI Miao-miao and HE Shuang contributed equally to the article

Corresponding author: HE Shuang (Email: 67105704@qq.com)

Conflicts of interest: none declared

患者 女性, 61 岁。主因头痛伴颅内杂音 2 个月, 于 2017 年 1 月 12 日入院。患者 2 个月前无明显诱因出现左侧颞顶叶持续性、搏动性疼痛, 伴持续性颅内“猫喘”样杂音, 未曾接受治疗; 病程中无头晕、恶心、呕吐、意识障碍及肢体无力等症状。既往无特殊病史, 个人史和家族史无可述及。发病 2 个月后至南通大学附属医院就诊(1 月 9 日), 根据所述症状与体征可疑颅内动脉瘤, 经头部 MRA 检查于左侧海绵窦区、外侧裂区及眼动脉见迂曲血管影(图 1), 门诊以“颈内动脉-海绵窦瘘”收入院。患者入院时神志清楚, 语言流利, 双侧瞳孔等大、等圆, 直径约为 3 mm, 对光反射灵敏, 左眼外展露白 2 mm, 左眼球轻度突出, 左眼听诊可闻及“吹风”样杂音, 压迫左颈动脉后杂音减弱, 余无特殊; 实验室检查无明显异常。结合临床表现与相关辅助检查, 拟诊颈内动脉-海绵窦瘘, 遂行颈内动脉-海绵窦瘘栓塞术, 术中 DSA 显示并非常规颈内动脉-海绵窦瘘, 基底动脉中段可见一支较粗的动脉为永存三叉动脉(PTA), 向海绵窦内引流(图 2), 故确诊为永存三叉

动脉-海绵窦瘘(成熟型), 即刻终止手术, 改行永存三叉动脉-海绵窦瘘栓塞术。术中先将导引导管送至左颈内动脉 C1 段, 待微导管送达海绵窦内即植入 5 枚 QC 可解脱弹簧圈[14 mm × 40 cm (2 枚), 12 mm × 40 cm、7 mm × 30 cm、6 mm × 20 cm (各 1 枚); 美国 EV3 公司], 左颈内动脉 DSA 显示瘘口消失(图 3a)后, 再将导引导管送至左椎动脉造影, 可见基底动脉通过粗大的永存三叉动脉仍向海绵窦内引流, 遂将微导管通过永存三叉动脉进入海绵窦内, 再植入 3 枚 QC 可解脱弹簧圈(4 mm × 12 cm、4 mm × 10 cm、4 mm × 8 cm, 美国 EV3 公司), 再缓慢注入 Onyx 胶(美国 EV3 公司)至其返流至永存三叉动脉, 即刻左椎动脉 DSA 显示瘘口消失(图 3b)。术后患者头痛、颅内杂音等症状消失, 且无神经系统并发症; 皮下注射低分子量肝素 5000 U/次(2 次/d)预防永存三叉动脉内血栓向基底动脉延伸, 共治疗 4 天, 同时口服甲钴胺 500 μg/次(3 次/d), 连续治疗 6 天。患者共住院 11 天, 出院后继续口服甲钴胺, 剂量同前。出院后 3 个月电话随访, 无头痛、颅内杂音及肢体无力等症状。

doi: 10.3969/j.issn.1672-6731.2022.07.015

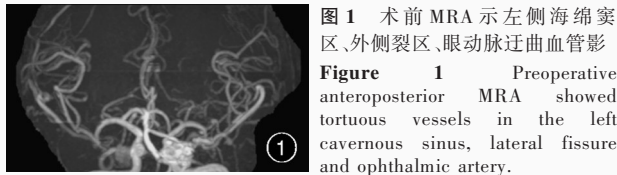
作者单位: 226000 江苏省南通市第三人民医院神经内科(施妙妙); 226001 南通大学附属医院神经内科(何爽)

施妙妙与何爽对本文有同等贡献

通讯作者: 何爽, Email: 67105704@qq.com

## 讨 论

颈内动脉-海绵窦瘘系颈内动脉与海绵窦之间的异常动静脉沟通<sup>[1]</sup>, 是一种临床少见的脑血管

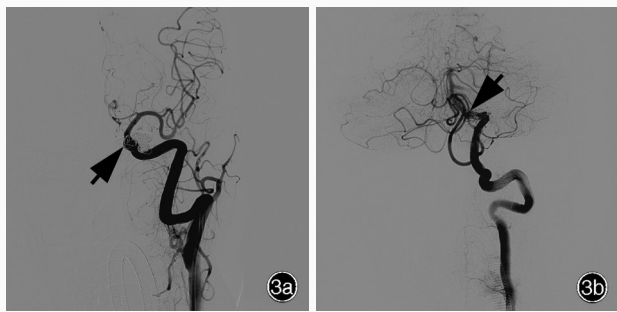


**图 1** 术前 MRA 示左侧海绵窦区、外侧裂区、眼动脉迂曲血管影  
**Figure 1** Preoperative anteroposterior MRA showed tortuous vessels in the left cavernous sinus, lateral fissure and ophthalmic artery.



**图 2** 术中 DSA 显示永存三叉动脉-海绵窦瘘(箭头所示) 2a 左颈内动脉正位像 2b 左颈内动脉侧位像 2c 左椎动脉正位像 2d 左椎动脉侧位像

**Figure 2** Intraoperative DSA showed PTA-cavernous fistula (arrows indicate). Anteroposterior view of left ICA (Panel 2a). Lateral view of left ICA (Panel 2b). Anteroposterior view of left VA (Panel 2c). Lateral view of left VA (Panel 2d).



**图 3** 术后即刻 DSA 显示瘘管和永存三叉动脉完全闭塞(箭头所示) 3a 左颈内动脉正位像 3b 左椎动脉正位像

**Figure 3** Immediate postoperative DSA showed completely occlusion of the fistula and PTA (arrows indicate). Anteroposterior view of left ICA (Panel 3a). Anteroposterior view of left VA (Panel 3b).

病,发病率仅为 0.17% ~ 0.27% [2],而与永存三叉动脉相关的颈内动脉-海绵窦瘘更为罕见。

胚胎期颈内动脉与基底动脉之间共存在 4 支吻合血管,分别为原始三叉动脉、原始舌下动脉、原始耳动脉以及寰椎前节间动脉。这些胚胎吻合血管

最早于胚胎 3 mm 期(胚胎第 26 天)开始发育,胚胎 11.50 mm 期(胚胎第 34 天)逐渐消退,至胚胎 14 mm 期(胚胎第 45 天)完全退化,其功能由后交通动脉替代 [3-4]。若这些胚胎吻合血管不退化并持续存在至成人,即成为永存颈内动脉-基底动脉吻合。其中以永存三叉动脉最为常见,占 80% ~ 85% [5];存在永存三叉动脉的比例为 0.02% ~ 0.60% [6]。永存三叉动脉因血管壁发育缺陷易形成动脉瘤 [7-8],破裂后可导致永存三叉动脉-海绵窦瘘;临床主要表现为颅内血管杂音、搏动性突眼、球结膜水肿充血、脑缺血性损害等症状。

永存三叉动脉与后循环之间的供血关系存在多种情况, Saltzman [9] 和 Lie [10] 根据解剖关系将永存三叉动脉与后循环之间的血流情况分为三型: I 型为大脑后动脉、小脑上动脉由永存三叉动脉供血; II 型为同侧大脑后动脉由后交通动脉供血,对侧大脑后动脉和双侧小脑上动脉由永存三叉动脉供血; III 型为双侧大脑后动脉由后交通动脉供血 [11]。但上述 3 种类型无法完全覆盖所有供血类型 [12-14], 因此 Weon 等 [14] 于 2011 年在 Saltzman [9] 和 Lie [10] 分类的基础上重新进行分类,共分为五型: 1 型,永存三叉动脉主要供应基底远端动脉、大脑后动脉和小脑上动脉区域; 2 型,永存三叉动脉主要供应小脑上动脉区域,而大脑后动脉主要通过后交通动脉接受血供; 3 型,永存三叉动脉供应对侧大脑后动脉,同侧大脑后动脉通过后交通动脉从前循环获得血供; 4 型,永存三叉动脉供应同侧大脑后动脉,对侧大脑后动脉通过后交通动脉从前循环获得血供; 5 型,永存三叉动脉不与基底动脉发生吻合,而是吻合于椎基底动脉分支血管。从功能学上, Iizaku 等 [15] 根据椎基底动脉系统是否依赖颈内动脉供血将永存三叉动脉供血情况分为两型: 幼稚型为后循环系统依赖于永存三叉动脉供血; 成熟型为后循环系统不依赖永存三叉动脉供血。

颈内动脉-海绵窦瘘的治疗目的是消除动静脉瘘并保持颈内动脉通畅,实现解剖学意义上的治愈。目前,血管内治疗已成为颈内动脉海绵窦瘘的首选方法 [16],随着介入技术及材料的不断更新与进步,可脱式球囊、可解脱弹簧圈联合 Onyx 胶、覆膜支架等均可应用于颈内动脉-海绵窦瘘的治疗。可脱式球囊是颈内动脉-海绵窦瘘早期栓塞的主要方法 [15],但因存在球囊早泄、移位等不良事件 [17-18]

而逐渐被淘汰;覆膜支架比较适合瘘口小且多或者瘘口较大的患者<sup>[19-20]</sup>,但术后需长期服用阿司匹林和氯吡格雷而非首选;目前应用更为广泛的方法是可解脱弹簧圈联合 Onyx 胶,其稳定性良好且不易复发<sup>[21-22]</sup>。目前临床关于永存三叉动脉-海绵窦瘘的病例报道较少,治疗方法也主要以血管内介入治疗为主,栓塞材料多为经动脉和(或)静脉入路的弹簧圈和球囊<sup>[5]</sup>。本文患者术前颈动脉压迫试验压迫颈内动脉杂音明显减弱,推测自颈内动脉端进行瘘口栓塞有效,故采取经左颈内动脉至海绵窦栓塞术。先经左颈内动脉至海绵窦内植入可解脱弹簧圈,并于左颈内动脉造影显示瘘口消失提示弹簧圈栓塞效果良好,为避免 Onyx 胶返流造成颈内动脉系统栓塞<sup>[23]</sup>,故不叠加使用 Onyx 胶,结束左颈内动脉端的操作;再经左椎动脉造影进行探查,发现永存三叉动脉仍向海绵窦供血,由于该例患者永存三叉动脉较长且属于成熟型,推测闭塞后发生缺血症状的概率较低,所以通过左椎动脉经永存三叉动脉进入海绵窦内,植入可解脱弹簧圈并注入适量 Onyx 胶,使胶水返流至永存三叉动脉致其部分闭塞,既达到降低永存三叉动脉-海绵窦瘘复发率的目的,同时又不造成基底动脉栓塞。

有研究认为,永存三叉动脉的“存在总是有用的”<sup>[24]</sup>,力求在闭塞瘘口的同时保留永存三叉动脉,以达到影像学 and 临床的双重治愈。然而,完美闭塞瘘口并同时保留永存三叉动脉,势必使手术难度增加,瘘口封闭后不仅需再行颅内支架植入术<sup>[25]</sup>,而且需长期服用抗血小板药物,影响生活质量。本研究团队采用可解脱弹簧圈结合 Onyx 胶栓塞瘘口并闭合永存三叉动脉,术后未发生任何缺血症状,说明对于成熟型永存三叉动脉采取永久性闭合不失为一种简单且安全有效的方法。

利益冲突 无

### 参 考 文 献

- [1] Chan YL, Shing KK, Wong KC, Poon WS. Transvenous embolisation of a carotid-trigeminal cavernous fistula[J]. Hong Kong Med J, 2006, 12:310-312.
- [2] Théaudin M, Saint-Maurice JP, Chapot R, Vahedi K, Mazighi M, Vignal C, Saliou G, Stapf C, Boussier MG, Houdart E. Diagnosis and treatment of dural carotid-cavernous fistulas: a consecutive series of 27 patients [J]. J Neurol Neurosurg Psychiatry, 2007, 78:174-179.
- [3] Su Z, Li TL, Yang QF. Primitive trigeminal artery and cerebrovascular disease [J]. Zhonghua Shen Jing Ke Za Zhi, 2001, 34:120-121.[苏正,李铁林,杨绮帆.原始三叉动脉与脑血管病[J].中华神经科杂志,2001,34:120-121.]
- [4] Wang YW, Liang Y, Du BL. Imaging findings, and clinical significance of persistent trigeminal artery classification [J]. Yi Xue Ying Xiang Xue Za Zhi, 2020, 30:1138-1140.[王晏文,梁奕,杜柏林.永存三叉动脉分型的影像学表现及临床意义[J].医学影像学杂志,2020,30:1138-1140.]
- [5] Zhang CW, Wang T, Richard SA, Lui LX, Xu D, Xie XD. Posttraumatic trigeminal-cavernous fistula [J]. World Neurosurg, 2018, 116:152-154.
- [6] Hoang TT, Nguyen CN, Nguyen AQ, Nguyen HL, Subramanian PS, Pham VT. Contralateral ocular manifestations of a carotid cavernous fistula associated with primitive persistent trigeminal artery [J]. J Neuroophthalmol, 2021, 41:e803-805.
- [7] Harada K, Uozumi T, Kurisu K, Sumida M, Nakahara A, Migita K. Evaluation of cerebro-vascular diseases with persistent carotid-basilar anastomosis [J]. No Shinkei Geka, 1994, 22:115-1158.
- [8] George AE, Lin JP, Morantz RA. Intracranial aneurysm on a persistent primitive trigeminal artery: case report [J]. J Neurosurg, 1971, 35:601-604.
- [9] Saltzman GF. Patent primitive trigeminal artery studied by cerebral angiography [J]. Acta radiol, 1959, 51:329-336.
- [10] Lie TA. Congenital anomalies of the carotid arteries [M]. Amsterdam: Excerpta Medica Foundation, 1969: 143.
- [11] Hattori T, Kobayashi H, Inoue S, Sakai N. Persistent primitive trigeminal artery associated with absence of internal carotid artery [J]. Surg Neurol, 1998, 50:352-355.
- [12] Ali S, Radaideh MM, Shaibani A, Russell EJ, Walker MT. Persistent trigeminal artery terminating in the posterior inferior cerebellar artery: case report [J]. Neurosurgery, 2008, 62:E746-748.
- [13] Raphaeli G, Bandeira A, Mine B, Brisbois D, Lubicz B. A rare variant of persistent trigeminal artery: cavernous carotid-cerebellar artery anastomosis: a case report and a systematic review [J]. Cerebellum, 2009, 8:445-447.
- [14] Weon YC, Choi SH, Hwang JC, Shin SH, Kwon WJ, Kang BS. Classification of persistent primitive trigeminal artery (PPTA): a reconsideration based on MRA [J]. Acta Radiol, 2011, 52:1043-1051.
- [15] Iizuka Y, Maehara T, Nakanishi H, Arai H. Embolisation of a persistent primitive trigeminal artery for a large cavernous aneurysm: a case report [J]. Interv Neuroradiol, 1999, 5:321-325.
- [16] Brenna CTA, Priola SM, Pasarikovskii CR, Ku JC, Daigle P, Gill HS, DeSerres JJ, Antonyshyn O, Da Costa L, Yang V. Surgical sparing and pairing endovascular interventions for carotid-cavernous fistula: case series and review of the literature [J]. World Neurosurg, 2020, 140:18-25.
- [17] Ohshima T, Kawaguchi R, Miyachi S, Matsuo N. Traumatic carotid-cavernous fistula associated with persistent primitive trigeminal artery successfully treated using in-stent coil embolization [J]. World Neurosurg, 2019, 128:360-364.
- [18] Xu XQ, Liu S, Zu QQ, Zhao LB, Xia JG, Zhou CG, Zhou WZ, Shi HB. Follow-up of 58 traumatic carotid-cavernous fistulas after endovascular detachable-balloon embolization at a single center [J]. J Clin Neurol, 2013, 9:83-90.
- [19] Madan A, Mujic A, Daniels K, Hunn A, Liddell J, Rosenfeld JV. Traumatic carotid artery-cavernous sinus fistula treated with a covered stent: report of two cases [J]. J Neurosurg, 2006, 104:969-973.
- [20] Kou XB, Wang ZH. Exploration the principles for postoperative management of recurrent CCF after endovascular balloon embolization [J]. Ning Xia Yi Ke Da Xue Xue Bao, 2020, 42:

- 1017-1020.[寇小波, 王朝华. 颈内动脉海绵窦瘘球囊栓塞术后复发的处理[J]. 宁夏医科大学学报, 2020, 42:1017-1020.]
- [21] Zhang X, Guo W, Shen R, Sun J, Yin J, Chen X, Gao L, Chen Z, Zhang Q. Combined use of Onyx and coils for transarterial balloon-assisted embolization of traumatic carotid-cavernous fistulas: a report of 16 cases with 17 fistulas[J]. J Neurointerv Surg, 2016, 8:1264-1267.
- [22] Ren DP, Tu Y, Xue DY, Zhang S. Efficacy evaluation of embolization with Scepter balloon-assisted coils and Onyx glue for traumatic carotid cavernous fistula[J]. Zhonghua Chuang Shang Za Zhi, 2018, 34:201-205.[任登鹏, 涂悦, 薛德友, 张赛. Scepter 球囊保护下弹簧圈结合 Onyx 胶栓塞创伤性颈动脉海绵窦瘘的疗效评价[J]. 中华创伤杂志, 2018, 34:201-205.]
- [23] Yu Y, Huang Q, Xu Y, Hong B, Zhao W, Deng B, Zhang Y, Liu J. Use of onyx for transarterial balloon-assisted embolization of traumatic carotid cavernous fistulas: a report of 23 cases[J]. AJNR Am J Neuroradiol, 2012, 33:1305-1309.
- [24] Wang QJ, Fang B, Li TL, Duan CZ, Zhao QP, Xu RX. Trigeminal-cavernous fistula treated with GDC embolization[J]. Zhonghua Shen Jing Yi Xue Za Zhi, 2004, 3:361-362.[汪求精, 方兵, 李铁林, 段传志, 赵庆平, 徐如祥. 电解脱弹簧圈(GDC)治疗自发性永存三叉动脉-海绵窦瘘[J]. 中华神经医学杂志, 2004, 3:361-362.]
- [25] Guo YX, Li TL, Duan CZ, Wang QJ, Huang Q. Persistent trigeminal artery-cavernous fistula and internal carotid-persistent trigeminal artery aneurysms[J]. Zhongguo Shen Jing Jing Shen Ji Bing Za Zhi, 2004, 30:399-400.[郭元星, 李铁林, 段传志, 汪求精, 黄庆. 原始三叉动脉-海绵窦瘘和颈内动脉-原始三叉动脉动脉瘤[J]. 中国神经精神疾病杂志, 2004, 30:399-400.]

(收稿日期: 2022-05-20)

(本文编辑: 袁云)

## · 读者 · 作者 · 编者 ·

## 《中国现代神经疾病杂志》编辑部关于稿件参考文献的要求

《中国现代神经疾病杂志》编辑部对来稿的参考文献一律按照 GB/T 7714-2005《文后参考文献著录规则》采用顺序编码制著录, 依照其在文中出现的先后顺序用阿拉伯数字加方括号标出。尽量避免引用摘要作为参考文献。内部刊物、未发表资料、个人通信等请勿作为文献引用。每条参考文献著录项目应齐全, 不得用“同上”或“ibid”表示。参考文献中的主要责任者(专著作者、论文集主编、学位申报人、专利申请人、报告撰写人、期刊文章作者、析出文章作者)均全部列出。外文期刊名称用缩写, 以 *Index Medicus* 中的格式为准, 中文期刊用全名。每条参考文献均须著录起止页码。中英文双语形式著录时, 文献序号后先列出完整的中文文献英译文, 再列出中文文献。作者姓名的英译文采用汉语拼音形式表示, 姓大写, 名用缩写形式, 取每个字的首字母, 大写。期刊名称以汉语拼音注录。

(1) 期刊著录格式: 主要责任者. 题名[文献类型标志/文献载体标志]. 刊名, 年, 卷: 起页-止页.

举例: [1] Gao S. Ten-year advance of transcranial Doppler ultrasonography[J]. Zhongguo Xian Dai Shen Jing Ji Bing Za Zhi, 2010, 10:127-136.[高山. 经颅多普勒超声十年进展[J]. 中国现代神经疾病杂志, 2010, 10:127-136.]

(2) 著作或编著著录格式: 主要责任者. 题名: 其他题名信息[文献类型标志/文献载体标志]. 其他责任者(例如翻译者). 版本项(第1版不著录). 出版地: 出版者, 出版年: 引文起页-止页.

举例: [2] Louis DN, Ohgaki H, Wiestler OD, Cavenee WK. WHO classification of tumours of the central nervous system[M]. 4th ed. Li Q, Xu QZ, Trans. Beijing: Editorial Office of Chinese Journal of Diagnostic Pathology, 2011: 249-252.[Louis DN, Ohgaki H, Wiestler OD, Cavenee WK. 中枢神经系统肿瘤 WHO 分类[M]. 4 版. 李青, 徐庆中, 译. 北京: 诊断病理学杂志社, 2011: 249-252.]

(3) 析出文献著录格式: 析出文献主要责任者. 析出文献题名[文献类型标志/文献载体标志]//专著主要责任者. 专著题名: 其他题名信息. 版本项(第1版不著录). 出版地: 出版者, 出版年: 析出文献起页-止页.

举例: [3] 吕传真. 肌肉疾病[M]//史玉泉. 实用神经病学. 3 版. 上海: 上海科学技术出版社, 1994: 564-576.

(4) 电子文献著录格式: 必须于题名后著录[文献类型标志/文献载体标志], 一般同时于起页-止页后著录[引用日期]以及获取和访问路径.

举例: [4] 陈彪. 帕金森[M/CD]//贾建平, 张新卿. 神经系统疾病诊治进展[J/OL]. 北京: 中华医学电子音像出版社, 2005.

[5] Abood S. Quality improvement initiative in nursing homes: the ANA acts in an advisory role[J/OL]. Am J Nurs, 2002, 102(6):23[2002-08-12]. <http://www.nursingword.org/AJN/2002/june/Wawatch.htm>.

[6] Foley KM, Gelband H. Improving palliative care for cancer[M/OL]. Washington: National Academy Press, 2001[2002-07-09]. <http://www.nap.edu/books/0309074029/html>.

(5) 会议文献著录格式: 主要责任者. 题名: 其他题名信息[文献类型标志/文献载体标志], 会议地点, 年份. 出版地: 出版者, 出版年: 引文起页-止页.

举例: [7] 中国科技期刊编辑学会医学分会, 中华医学会杂志社. 第一届全国医药卫生期刊管理和学术研讨会资料汇编[C], 北戴河, 2002. 北京: 中国科技期刊编辑学会医学分会, 2002.