



Przetoka szyjno-jamista jako okulistyczna choroba wymagająca interdyscyplinarnego leczenia

Wojciech Luboń^{1,2}, Małgorzata Luboń^{1,2}, Ewa Mrukwa-Kominek^{1,2}

¹Klinika i Katedra Okulistyki, Wydział Nauk Medycznych, Śląski Uniwersytet Medyczny w Katowicach, Polska

²Oddział Okulistyki Dorosłych, Uniwersyteckie Centrum Kliniczne im. prof. K. Gibińskiego, Śląski Uniwersytet Medyczny w Katowicach, Polska

STRESZCZENIE

Celem pracy jest opis przypadku bezpośredniej przetoki szyjno-jamistej (CCF) oraz prezentacja ścieżki diagnostycznej i dalszego leczenia interdyscyplinarnego. Pacjentka, lat 78, została przyjęta na Oddział Okulistyki UCK w Katowicach z powodu podejrzenia guza wewnątrzgałkowego. Zgłaszała wytrzeszcz prawej gałki ocznej od 3 miesięcy oraz pogorszenie ostrości widzenia od 2 miesięcy. Przy przyjęciu stwierdzono znacznie obniżoną ostrość widzenia w oku prawym, oraz podwyższone ciśnienie wewnątrzgałkowe. W badaniu okulistycznym stwierdzono pulsującą wytrzeszcz, nastryk i obrzęk spojówek, a w badaniu dna oka odłączenie błony naczyniowej we wszystkich kwadrantach oraz rozsiane krwotoki śródsiatkówkowe. Badanie ultrasonografii ukazało hipoechogeniczną przestrzeń zagałkowo, natomiast badanie dopplerowskie poszerzoną żyłę oczną górną oraz przepływ naczyniowy typu tętniczego w jej świetle. Ze względu na podejrzenie CCF pacjentka została skierowana na Oddział Radiologii Interwencyjnej w celu wykonania angiografii subtrakcyjnej. Badanie

ukazało prawostronną bezpośrednią przetokę szyjno-jamistą. Ze względu na niewielki rozmiar przetoki zebrano interdyscyplinarne konsylium radiologów i okulistów, podczas którego ostatecznie ze względu na znaczne dolegliwości okulistyczne i ryzyko utraty widzenia zdecydowano o leczeniu zabiegowym pacjentki. Wykonano embolizację przetoki. Po zabiegu stan ogólny pacjentki uległ pogorszeniu – rozpoznano udar niedokrwienny OUN. Badanie okulistyczne zostało przeprowadzone 1 miesiąc po embolizacji. Ostrość widzenia uległa poprawie, CWG uległo normalizacji, pacjentka jest leczona neurologicznie.

Przetoka szyjno-jamista jest rzadką chorobą, jednak stanowi stan zagrażający utratą wzroku. To właśnie okulista jest często pierwszym lekarzem, do którego zgłasza się pacjent z manifestacją okulistyczną choroby. Decyzja co do leczenia powinna być podejmowana we współpracy z innymi specjalistami, ponieważ ryzyko leczenia zabiegowego może przewyższać ryzyko utraty widzenia.

SŁOWA KLUCZOWE: wytrzeszcz, embolizacja, jaskra, przetoka szyjno-jamista.

WPROWADZENIE

Przetoka szyjno-jamista (*carotid cavernous fistula* – CCF) jest zaburzeniem naczyniowym, które wynika z nieprawidłowego połączenia tętnic szyjnych z zatoką jamistą. Dochodzi wówczas do komunikacji krwi tętniczej pochodzącej z tętnicy szyjnej wewnętrznej lub tętnicy szyjnej zewnętrznej z krwią żylną znajdującą się w zatoce jamistej. W konsekwencji następuje wzrost ciśnienia w obrębie zatoki jamistej oraz w żylnych naczyniach drenujących, a także odwrócenie w nich kierunku przepływu krwi. Klasyfikacje przetok szyjno-jamistych obejmują kilka podziałów, które uwzględniają anatomie (przetoki bezpośrednie i pośrednie), hemodynamikę przepływu krwi (przetoki wysoko i niskoprzepływowe), oraz etiologię (pourazowe, samoistne) [1-4].

Przetoki bezpośrednie są najczęstszym występującym typem. W ich przypadku istnieje bezpośrednie połączenie pomiędzy tętnicą szyjną wewnętrzną (ICA) a zatoką jamistą. Biorąc pod uwagę ich warunki hemodynamiczne są to przetoki wysokoprzepływowe. Zdecydowana większość przypadków przetoki bezpośredniej wynika z urazu, który prowadzi do uszkodzenia ściany ICA. Odcinek ICA przebiegający przez zatokę jamistą jest szczególnie wrażliwy na uszkodzenie w przypadku złamań podstawy czaszki [5]. Szacuje się że CCF dotyka 0,2% pacjentów po urazie czaszkowo-mózgowym [2] oraz 3,8% pacjentów ze złamaniem podstawy czaszki [6]. W przeglądzie 91 przypadków bezpośredniej przetoki szyjno-jamistej Gupta i wsp. [7] stwierdzili, że uraz był przyczyną 85 z nich, a w pozostałych 6 przypadkach przyczyną było pęknięcie tętniaka. Ten typ przetoki bardzo rzadko może

AUTOR DO KORESPONDENCJI

dr n. med. Wojciech Luboń, Klinika i Katedra Okulistyki, Wydział Nauk Medycznych, Śląski Uniwersytet Medyczny w Katowicach, ul. Ceglana 35, 40-514 Katowice, e-mail: wojciech.lubon@gmail.com

pojawiać się idiopatycznie, dotyczy to szczególnie pacjentów z chorobami predysponującymi do zaburzeń w obrębie tkanki mięśniowej oraz włókien kolagenu.

Przetoki pośrednie występują rzadziej, hemodynamiczne są to przetoki o niskim przepływie i powstają jako konsekwencja pośredniego połączenia między zatoką jamistą a ICA lub ECA przez ich gałęzie oponowe. Większość z nich pojawia się spontanicznie, jednak stwierdzono związek pomiędzy częstością ich występowania a nadciśnieniem tętniczym, płcią żeńską i starszym wiekiem [4, 5].

Obraz kliniczny zależy od wielkości przetoki i panujących w jej obrębie warunków hemodynamicznych. W przypadku CCF bezpośredniej objawy są silniej wyrażone, a ich początek nagły. Wymienia się triadę objawów, tj. wytrzeszcz, szum naczyniowy w obrębie oczodołu oraz chemozę spojówek po stronie zajętej patologią. W przetokach pośrednich przepływ krwi jest wolniejszy, w związku z czym objawy kliniczne rozwijają się skrycie i są mniej wyrażone [8].

Częstą manifestacją choroby są: zaburzenia ruchomości gałek ocznych i opadanie powieki (będące skutkiem uszkodzenia nerwów czaszkowych III, IV, VI). Objawy te wynikają z anatomicznego przebiegu tych nerwów w obrębie zatoki jamistej. Mogą występować także ubytki w polu widzenia, bóle twarzy w obszarze unerwianym przez pierwszą i drugą gałąź nerwu trójdzielnego. Jeśli proces chorobowy trwa dłużej, mogą wystąpić: wzrost ciśnienia wewnątrzgałkowego

z wtórną jaskrą, zakrzep żyły środkowej siatkówki, krwotok do komory ciała szklonego. Wzrost ciśnienia wewnątrzgałkowego wynika z wstecznego przepływu krwi z zatoki jamistej do żyły ocznej górnej, a następnie zwiększonego ciśnienia w żyłach nadtwardówkowych i utrudnionego odpływu przez kanał Schlemma [9, 10].

OPIS PRZYPADKU

Pacjentka, lat 78, zgłosiła się na Izbę Przyjęć Oddziału Okulistyki UCK im Prof. K Gibińskiego SUM w Katowicach z powodu pogorszenia ostrości wzroku okiem prawym trwającym od około 2 miesięcy. Rodzina pacjentki podawała także występujące zaczerwienienie powiek oka prawego od 2 tygodni oraz wytrzeszcz prawej gałki ocznej od około 2–3 miesięcy. Pacjentka oraz rodzina negowała jakikolwiek wypadek czy uraz. Chora leczona była z powodu otępienia i demencji, do tej pory nie była leczona okulistycznie.

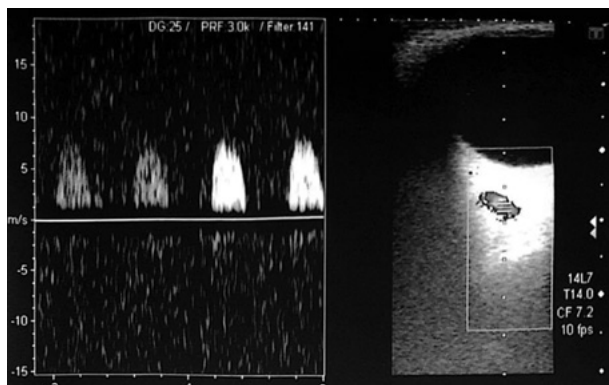
W przeprowadzonym badaniu okulistycznym stwierdzono najlepszą skorygowaną ostrość wzroku według tablic Snellena 0,1 dla oka prawego, 0,6 dla oka lewego, ciśnienie wewnątrzgałkowe zmierzone tonometrem aplanacyjnym Goldmana odpowiednio 27 mm Hg w oku prawym oraz 17 mm Hg w oku lewym. W badaniu klinicznym stwierdzono wytrzeszcz prawej gałki ocznej, nieznaczne ograniczenie ruchomości gałki ocznej prawej we wszystkich kierunkach, przekrwienie żyłne oraz chemozę spojówek gałkowych i po-



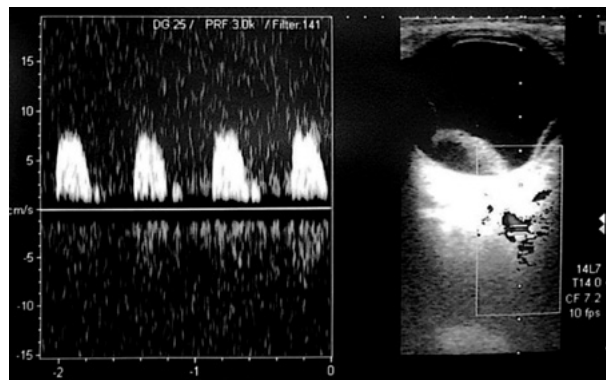
Rycina 1. Zdjęcie odcinka przedniego oka prawego



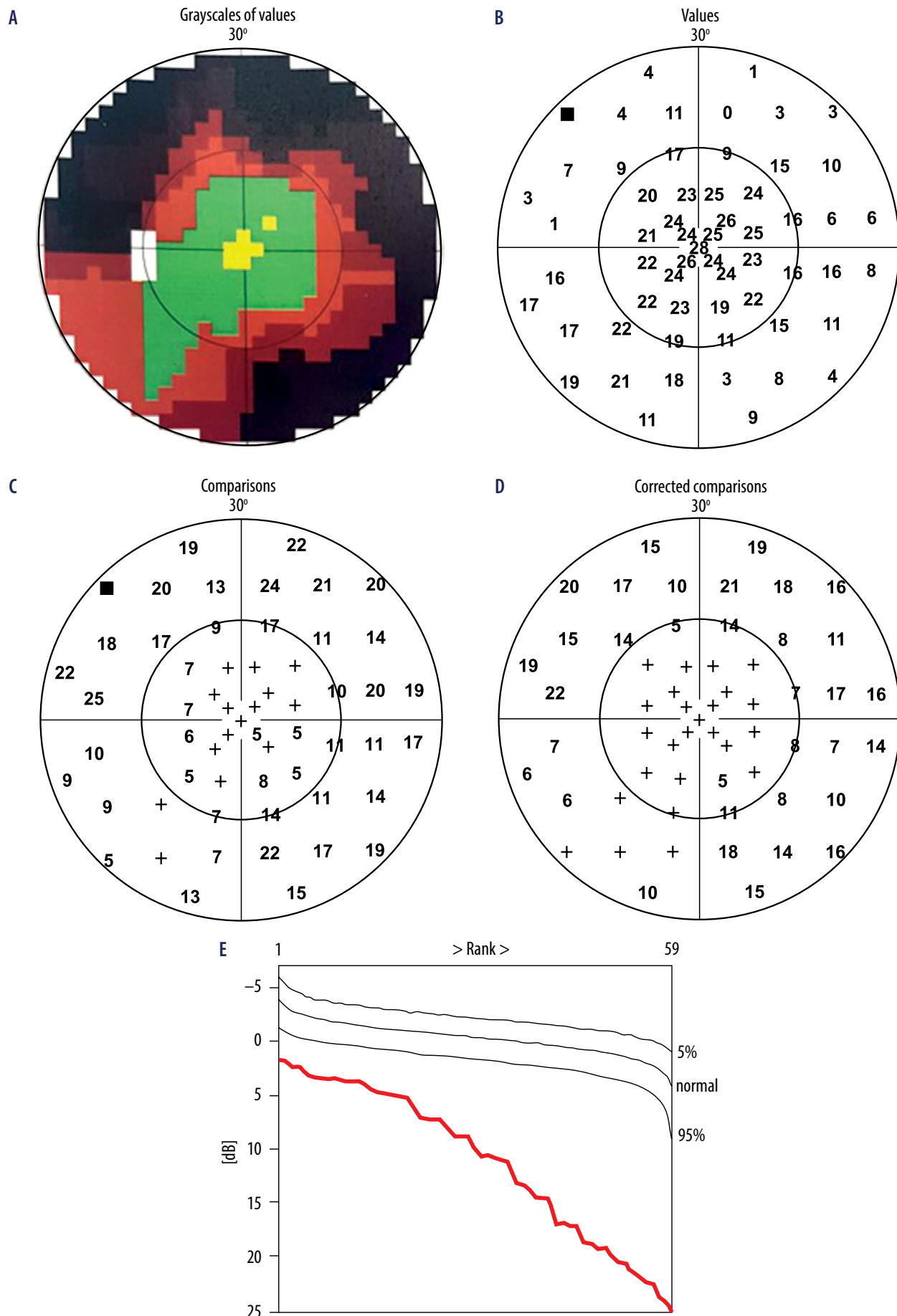
Rycina 2. Ultrasonografia gałki ocznej prawej



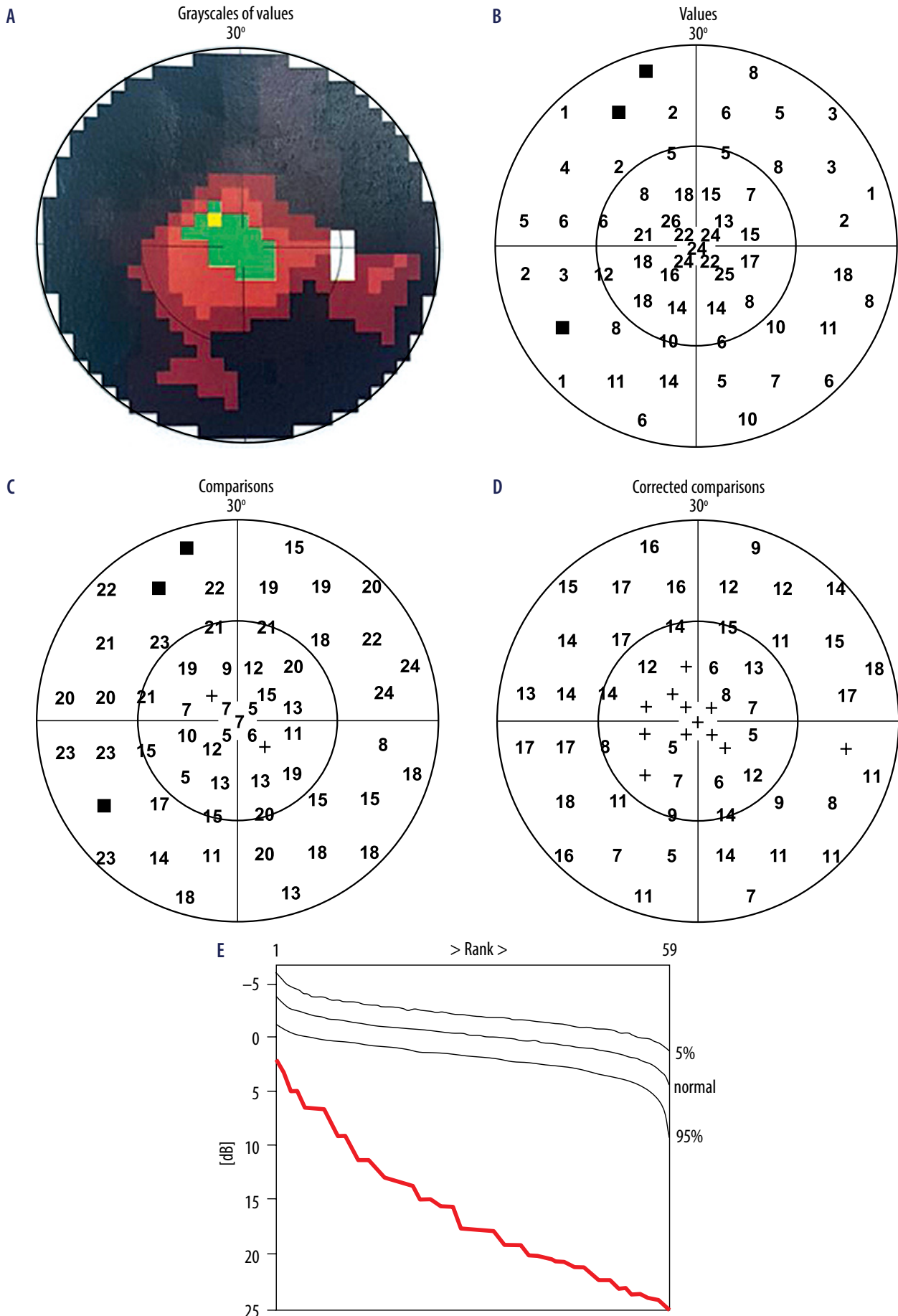
Rycina 3. Ultrasonografia dopplerowska gałki ocznej prawej



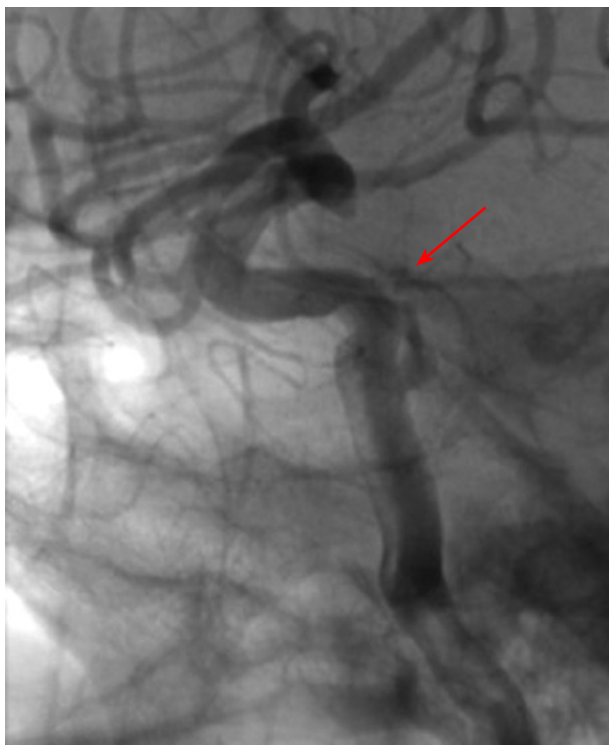
Rycina 4. Ultrasonografia dopplerowska gałki ocznej prawej



Rycina 5. Pole widzenia statyczne oka lewego



Rycina 6. Pole widzenia statyczne oka prawego



Rycina 7. Badanie DSA strzałka wskazuje CCF

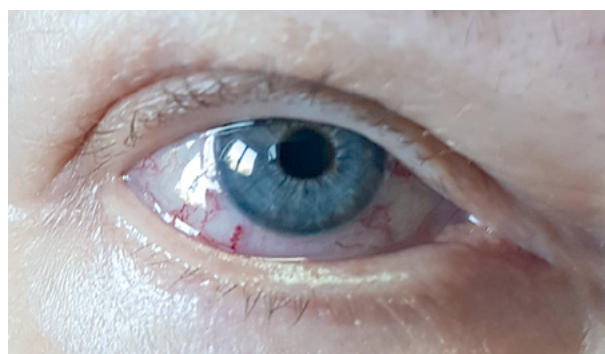
wiekowych oka prawego, a także zaćmę korowo-jądrową obu oczu (rycina 1). Rogówka oka prawego manifestowała cechy keratopatii ekspozycyjnej oraz widoczne ubytki filmu łzowego (test T-BUT < 5 sekund). W badaniu tylnego odcinka oka prawego zaobserwowano pojedyncze, rozsiane wybroczyny w obrębie siatkówki oraz na obwodzie odłączenie płaskie błony naczyniowej, badanie tylnego odcinka oka lewego nie wykazało odchyżeń od normy. Badanie ultrasonograficzne gałek ocznych potwierdziło płaskie (sięgające do 7 mm odłączenie błony naczyniowej w tylnym biegunie gałki ocznej prawej (rycina 2).

Pacjentka została przyjęta na Oddział Okulistyki celem poszerzenia diagnostyki oraz leczenia w warunkach szpitalnych. Włączono miejscowe leczenie obniżające ciśnienie wewnątrzgałkowe (timolol, brynzolamid), a także miejscowe lubrykanty (Carbomer 980 – 2 mg/g, 2,0% trehaloza i 0,25% hialuronianu sodu) w celu zapobiegnięcia keratopatii ekspozycyjnej. Zlecono badania ogólne krwi obejmujące także badanie stężenia hormonów tarczycy wraz z przeciwciałami TRAB. U pacjentki po ponownym wykonaniu badania USG gałki ocznej prawej stwierdzono hipoechogeniczną strukturę w lokalizacji pozagałkowej. Rozszerzono diagnostykę o badanie USG Doppler, które wykazało znacznie poszerzoną żyłę oczną górną, z przepływem krwi typu tętniczego w jej świetle (ryciny 3 i 4). W przeprowadzonym badaniu perimetrii statycznej stwierdzono znacznie zawężone koncentrycznie pola widzenia obu oczu, występujące bezwzględnie oraz względnie mroczki o większym nasileniu w oku prawym (ryciny 5 i 6).

W badaniu optycznej koherentnej tomografii komputerowej (OCT) wykazano znaczne ścieńczenie kompleksu komórek zwojowych siatkówki obu oczu, oraz ubytki warstwy



Rycina 8. Badanie DSA po zabiegu embolizacji, strzałka wskazuje miminalne zakontrastowanie CCF



Rycina 9. Odcinek przedni oka prawego miesiąc po wykonaniu zabiegu embolizacji CCF

włókien nerwowych siatkówki (RNFL). W wykonanym rezonansie magnetycznym oczodołów stwierdzono pogrubienie i obrzęk mięśni zewnątrzgałkowych gałki ocznej prawej, zmiany zapalne tkanek miękkich oczodołu prawego z rozległym odwarstwieniem kompleksu siatkówka-naczyniówka oraz poszerzenie żyły ocznej górnej po stronie prawej średnicy do 3 mm.

Na podstawie obrazu klinicznego, a także wykonanych badań dodatkowych wysunięto podejrzenie przetoki szyjno-jamistej po stronie prawej.

Po wdrożonym leczeniu uzyskano niewielkie zmniejszenie dolegliwości miejscowych pacjentki, a także normalizację CWG oka prawego. Pacjentkę przekazano na Oddział Neurochirurgii, gdzie wykonano badanie cyfrowej angiografii subtrakcyjnej (DSA), w którym opisano bezpośrednią przetokę szyjno-jamistą z wtórnym miernego stopnia poszerzeniem naczyń żylnych oczodołu prawego (rycina 7).

W związku z pogorszeniem ostrości wzroku oka prawego, jaskrą wtórną, a także subiektywnym dolegliwościami

pacjentki zdecydowano o wykonaniu embolizacji przetoki. Zabieg przeprowadzono na Oddziale Neurochirurgii.

Zabieg wykonano w sposób typowy, bez powikłań, uzyskując częściową embolizację przetoki (rycina 8).

W trakcie pozabiegowej obserwacji pacjentki doszło do pogorszenia jej stanu ogólnego. Wykonano rezonans magnetyczny głowy, stwierdzając w obrębie prawej tętnicy środkowej mózgu materiał embolizacyjny, zmiany niedokrwienia po stronie prawej głowy jądra ogoniastego, przedniej części torebki zewnętrznej i wewnętrznej oraz przedniej części jądra soczewkowatego. Pacjentkę konsultowano neurologicznie, potwierdzono związek między opisywanymi zmianami w obrębie ośrodkowego układu nerwowego a prezentowanymi przez pacjentkę objawami. Zastosowano leczenie przeciwkrzepliwie oraz monitorowano ciśnienie tętnicze. Po trwającej 10 dni hospitalizacji pacjentkę wypisano do domu.

Badanie kontrolne w poradni okulistycznej 1 miesiąc po wykonanej embolizacji wykazało najlepszą skorygowaną ostrość widzenia do dali 0,6 dla obu oczu, ciśnienie wewnątrzgałkowe obu oczu 16 mm Hg. W badaniu przedniego odcinka oka stwierdzono poszerzone, o krętym przebiegu, naczynia krwionośne twardówki oraz zaćmę korowo-jądrową bez cech progresji. Nie stwierdzono wytrzeszczu gałki ocznej prawej a ruchomość gałki ocznej była zachowana, prawidłowa we wszystkich kierunkach. Zaobserwowano niewielkie cechy keratopatii ekspozycyjnej (rycina 9). Na podstawie relacji rodziny pacjentki stwierdzono znaczne pogorszenie procesów poznawczych pacjentki i wymagała ona pomocy osób trzecich przy wykonywaniu codziennych czynności.

DYSKUSJA

W opisywanym przypadku występująca u pacjentki przetoka szyjno-jamista występowała z towarzyszącymi powikłaniami okulistycznymi mogącymi prowadzić do trwałych uszkodzeń narządu wzroku. Na podstawie przeprowadzonych badań dodatkowych rozpoznano wtórą jaskrę, jednak z powodu braku wcześniejszych badań okulistycznych pacjentki trudno jest w jednoznaczny sposób określić, czy jedynym patomechanizmem powstania uszkodzeń kompleksu komórek zwojowych i włókien nerwu wzrokowego była występująca przetoka.

Leczenie przetoki szyjno-jamistej uzależnione jest od stopnia nasilenia objawów klinicznych, typu przetoki oraz ryzyka krwotoku wewnątrzczaszkowego, jakie niesie ze sobą [11]. Według literatury przetoki bezpośrednio o wy-

sokim przepływie wymagają leczenia, ponieważ wiąże się z nimi wysokie ryzyko krwawienia wewnątrzczaszkowego. Niskoprzepływowe pośrednie CCF, zarówno bezobjawowe, wykryte przypadkowo, jak i skapoobjawowe nie są związane z istotnym ryzykiem krwawienia śródmózgowego. W takim przypadku przyjęte jest leczenie objawów okulistycznych zachowawczo z zastosowaniem leków miejscowych lub zewnętrznego ucisku tętnicy szyjnej (6–15 razy w ciągu dnia przez 10 sekund) [12, 13]. Jeśli występujące objawy wywołują trwałe powikłania okulistyczne proponuje się zabiegowe interwencje wewnątrznacyniowe. Pierwszą opcją leczenia powinna być embolizacja wewnątrznacyniowa za pomocą balonów, spiral (*coil*), stentów lub płynnych środków przeciwzatorowych. Zabieg można wykonać z dostępu tętniczego lub żylnego, a wskaźnik sukcesu terapeutycznego jest wysoki [14, 15]. Jeśli pacjent nie jest podatny na embolizację lub embolizacja nie powiodła się, należy zaproponować operację chirurgicznego podwiązania tętnicy szyjnej wewnętrznej lub wypełnienie (*packing*) zatoki jamistej. Radiochirurgia stereotaktyczna może być opcjonalnym leczeniem CCF o niskim przepływie, ale nie odgrywa istotnej roli w leczeniu CCF o wysokim przepływie [16].

Decydując się na leczenie zabiegowe CCF, należy wziąć pod uwagę ryzyko powikłań śród- i pooperacyjnych, przede wszystkim – następczy zator naczyń krwionośnych OUN, mogący wywołać trwałe, negatywne skutki neurologiczne [17–19].

WNIOSKI

Bezpośrednia przetoka szyjno-jamista z towarzyszącymi objawami i powikłaniami okulistycznymi zagrażającymi utratą wzroku wymaga leczenia z zakresu radiologii interwencyjnej. Jednak należy pamiętać, iż pomimo ustąpienia objawów okulistycznych i częściowej embolizacji przetoki może dojść, jak w przypadku opisywanej pacjentki, do niepożądanych następstw pooperacyjnych w postaci wtórnego udaru OUN.

Pacjentka wymaga stałej opieki neurologicznej i okulistycznej. Zabieg embolizacji okazał się skuteczny, a oczne objawy przetoki nie nawróciły w ciągu 6 miesięcy obserwacji.

OŚWIADCZENIA

Autorzy deklarują brak konfliktu interesów.

Praca nie uzyskała finansowania zewnętrznego.

Zgoda Komisji Bioetycznej nie była wymagana.

Piśmiennictwo

1. Stoczyńska M, Świercz-Lądkowska A, Tomczak A, Zapaśnik A. Przetoki szyjno-jamiste: postępowanie diagnostyczno-terapeutyczne na przykładzie przypadków klinicznych o różnej etiologii. *Pol Przegl Neurol* 2019; 15: 40-48.
2. Ellis JA, Goldstein H, Connolly ES Jr, Meyers PM. Carotid-cavernous fistulas. *Neurosurg Focus* 2012; 32: E9.
3. Kohli GS, Patel BC. Carotid Cavernous Fistula. In: *StatPearls* [Internet]. StatPearls Publishing, Treasure Island (FL) 2022.
4. Čmelo J. Carotid-cavernous fistula from the perspective of an ophthalmologist. A Review. *Cesk Slov Oftalmol* 2020; 1: 1-8.
5. Barrow DL, Spector RH, Braun IF i wsp. Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. *J Neurosurg* 1985; 62: 248-256.
6. Liang W, Xiaofeng Y, Weiguo L i wsp. Traumatic carotid cavernous fistula accompanying basilar skull fracture: A study on the incidence of traumatic carotid cavernous fistula in the patients with basilar skull fracture and the prognostic analysis about traumatic carotid cavernous fistula. *J Trauma* 2007; 63: 1014-1020.

7. Gupta AK, Purkayastha S, Krishnamoorthy T i wsp. Endovascular treatment of direct carotid cavernous fistulae: A pictorial review. *Neuroradiology* 2006; 48: 831-839.
8. Ringer AJ, Salud L, Tomsick TA. Carotid cavernous fistulas: anatomy, classification, and treatment. *Neurosurg Clin N Am* 2005; 16: 279-295.
9. Henderson AD, Miller NR. Carotid-cavernous fistula: current concepts in aetiology, investigation, and management. *Eye (Lond)* 2018; 32: 164-172.
10. Calafiore S, Perdicchi A, Scuderi G i wsp. Glaucoma Management in Carotid Cavernous Fistula. *Case Rep Ophthalmol* 2016; 7: 296-302.
11. Williams ZR. Carotid-Cavernous Fistulae: A Review of Clinical Presentation, Therapeutic Options, and Visual Prognosis. *Int Ophthalmol Clin* 2018; 58: 271-294.
12. Kai Y, Morioka M, Yano S i wsp. External Manual Carotid Compression is Effective in Patients with Cavernous Sinus Dural Arteriovenous Fistulae. *Interv Neuroradiol* 2007; 13 Suppl 1 (Suppl 1): 115-122.
13. Duchnik I, Babik A, Poręba N, Romanowska-Dixon B. Indirect carotid-cavernous fistula – diagnostic problems. *Klin Oczna* 2017; 119: 224-229.
14. Hassan T, Rashad S, Aziz W i wsp. Endovascular Modalities for the Treatment of Cavernous Sinus Arteriovenous Fistulas: A Single-Center Experience. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 2015; 24: 2824-2838.
15. Chugh AJS, Duan Y, Hu YC. Treatment of a rare and complex carotid-cavernous fistula. *BMJ Case Rep* 2021; 14: e240596.
16. Prstojević B, Mićović M, Vukasinović I, Nagulčić M. Transvenous embolization of dural carotid cavernous fistula through the facial and ophthalmic vein. *Vojnosanit Pregl* 2011; 68: 1079-1083.
17. Terashima H, Higa T, Kato K i wsp. [A Case of Bilateral Traumatic Carotid-Cavernous Fistula]. *No Shinkei Geka* 2017; 45: 527-532 [Article in Japanese].
18. Iampreechakul P, Tanpun A, Lertbusayanukul P, Siriwimonmas S. Contralateral extensive cerebral hemorrhagic venous infarction caused by retrograde venous reflux into the opposite basal vein of Rosenthal in posttraumatic carotid-cavernous fistula: A case report and literature review. *Interv Neuroradiol* 2018; 24: 546-558.
19. Lee RJ, Chen CF, Hsu SW i wsp. Cerebellar hemorrhage and subsequent venous infarction followed by incomplete transvenous embolization of dural carotid cavernous fistulas: a rare complication: case report. *J Neurosurg* 2008; 108: 1245-1248.