

FISTULE CAROTIDO-CAVERNEUSE POST-TRAUMATIQUE

E. GASSAB, N. KRIFA, * T. TAYEB, N. SAYAH, ** S. TOUMI, *** A. ZRIG,
K. HARRATHI, J. KOUBAA

SERVICE D'ORL ET DE CHIRURGIE CERVICO-FACIALE
** SERVICE D'ANESTHESIE ET DE REANIMATION
*** SERVICE DE RADIOLOGIE
CHU FATTOUMA BOURGUIBA DE MONASTIR
* SERVICE DE CHIRURGIE MAXILLOFACIALE
CHU SAHLOUL DE SOUSSE

RESUME

Introduction : La fistule carotido-caverneuse (FCC) est une complication rare, mais grave des traumatismes craniofaciaux pouvant engager le pronostic fonctionnel oculaire et le pronostic vital. Elle réalise une communication anormale entre le système artériel carotidien et le sinus caverneux.

Buts : Rapporter un cas de FCC directe post-traumatique et étudier les aspects cliniques, diagnostiques et thérapeutiques de cette pathologie.

Observation : Nous rapportons un cas de FCC apparue dans les suites d'un traumatisme craniofacial et survenue chez un homme de 25 ans ayant été victime d'un accident de la voie publique. Le diagnostic a été suspecté devant l'apparition, au 19ème jour d'hospitalisation, d'une exophtalmie unilatérale gauche pulsatile associée à un important chémosis et à une pupille aréflexique. Une artériographie cérébrale pratiquée 9 jours après la constatation de l'exophtalmie a objectivé une large FCC gauche. Une embolisation au moyen de deux ballonnets intravasculaires largables et de l'injection de colle biologique a été réalisée au même temps sans incidents permettant d'obtenir l'occlusion complète de la fistule. L'évolution a été marquée par la régression de l'exophtalmie et du chémosis et par l'amélioration partielle de l'acuité visuelle.

Conclusion : Le traitement des FCC est urgent et est principalement basé sur la neuroradiologie interventionnelle. En effet, l'angiographie cérébrale constitue l'examen clé et possède un double intérêt diagnostique et thérapeutique.

Mots clés : fistule carotido-caverneuse, traumatisme craniofacial, artériographie cérébrale, embolisation.

SUMMARY

Introduction: Carotid cavernous fistula (CCF) is an uncommon, but dangerous, complication of craniofacial trauma. It is a life-threatening condition and can lead to ocular sequelae. It results from an abnormal vascular interconnection between a branch of the carotid artery and the cavernous sinus.

Purpose: The aim of this work is to report a case of a direct post-traumatic CCF and to examine the clinical, diagnostic and therapeutic features of this pathology.

Case report: We report a case of direct CCF that occurred in a 25-year-old man after a craniofacial trauma. The diagnosis was suspected at day 19 of hospitalization in front of appearance of left pulsatile proptosis with important chemosis and areflexic pupil. Cerebral angiography was done 9 days after occurrence of the exophtalmus and established the diagnosis of large direct left CCF. Embolisation with two detachable intravascular balloons and biologic glue injection was then practiced in the same time without complications and allowed a complete occlusion of the fistula. The follow-up showed disappearance of proptosis and chemosis, but the improvement of the visual keenness was partial.

Conclusion: The treatment of CCF is an emergency. Endovascular techniques are now the first line treatment for most cases of CCF. Cerebral angiography is essential in confirming the diagnosis and in performing the treatment in the same session.

Keywords: carotid cavernous fistula, craniofacial trauma, cerebral angiography, embolization.

INTRODUCTION

La fistule carotido-caverneuse (FCC) est une communication aberrante, située au niveau de la base du crâne, entre le système artériel carotidien et le sinus caverneux

(1). C'est la forme la plus fréquente des fistules artérioveineuses cérébrales post-traumatiques (2, 3). Il s'agit d'une complication rare, mais grave survenant dans environ 0,2 à 0,3% des traumatismes craniofaciaux (4). Le



contexte traumatique est retrouvé dans 72 à 90 % des cas selon les études (5-7).

Le diagnostic est suspecté cliniquement et est confirmé par l'artériographie cérébrale (2, 5). Un diagnostic précoce est indispensable du fait que la FCC peut engager aussi bien le pronostic vital que fonctionnel oculaire (2). La situation profonde du sinus caverneux rend le traitement chirurgical difficile. Le pronostic s'est largement amélioré ces 20 dernières années grâce aux progrès de la neuroradiologie interventionnelle (2).

Le but de notre travail est de rapporter un cas de FCC directe post-traumatique et d'étudier les aspects cliniques, diagnostiques et thérapeutiques de cette pathologie.

OBSERVATION

Il s'agissait d'un patient âgé de 25 ans qui a été hospitalisé en milieu de réanimation, suite à un accident de la voie publique, pour polytraumatisme (traumatisme cranio-facial associé à un traumatisme du bassin).

L'examen initial a retrouvé un score de Glasgow à 6/15, une épistaxis bilatérale, un rythme respiratoire irrégulier et un état hémodynamique stable. La tomodensitométrie (TDM) cérébrale pratiquée après intubation, réanimation et méchage a montré une hémorragie méningée associée à des lésions pétéchiales diffuses, une pneumocéphalie, ainsi qu'un comblement des sinus maxillaires, sphénoïdaux et des cellules éthmoïdales.

L'évolution a été marquée par l'amélioration de l'état neurologique, la survenue d'épisodes d'épistaxis itératifs ayant nécessité des méchages répétés et l'apparition au 19ème jour d'hospitalisation d'une exophtalmie battante unilatérale gauche associée à un chémosis important et à une pupille aréflexique (figure 1).



Fig 1. : Exophtalmie gauche associée à un chémosis important (aspect en « tête de méduse »).

Le fond d'œil pratiqué a objectivé une papille hyperhémisée sans dilatation veineuse, ni hémorragie rétinienne.

La TDM orbitaire et cérébrale a montré la présence d'une exophtalmie gauche grade III, un épaississement du muscle droit inférieur et des parties molles palpébrales avec densification de la graisse orbitaire, une dilatation de la veine ophtalmique supérieure gauche (figure 2) et une opacification asymétrique des sinus caverneux (figure 3).

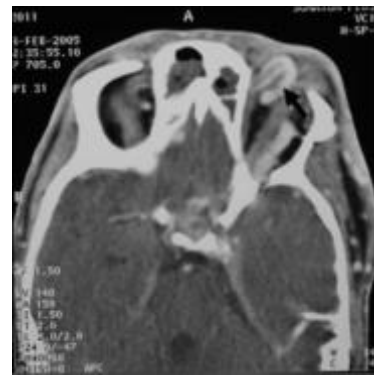


Fig 2. : TDM orbitaire et cérébrale: coupe axiale avec injection de produit de contraste : dilatation de la veine ophtalmique supérieure gauche (flèche).



Fig 3. : TDM orbitaire et cérébrale: coupe axiale avec injection de produit de contraste : asymétrie des sinus caverneux (élargi à gauche (flèche)).

Le diagnostic de FCC gauche a été alors fortement suspecté.

L'artériographie cérébrale pratiquée 9 jours après l'apparition de l'exophtalmie a montré une large FCC directe gauche (figure 4).

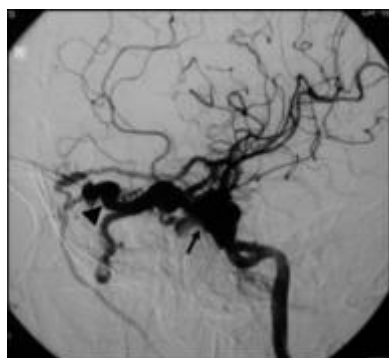


Fig 4. : Artériographie cérébrale (Profil): FCC directe gauche (flèche) et opacification de la veine ophtalmique supérieure gauche qui est dilatée (tête de flèche).

Une embolisation par 2 ballonnets largables et l'injection de colle biologique a été pratiquée dans le même temps interventionnel. Le contrôle angiographique a objectivé une occlusion complète de la fistule avec une artère carotide interne perméable et une bonne circulation au niveau du polygone de Willis et de l'artère sylvienne gauche (figure 5).

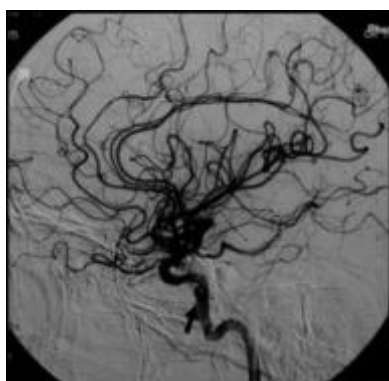


Fig 5. : Artériographie cérébrale (Profil): contrôle post-embolisation: ballonnets en place (flèche) et artère carotide interne gauche perméable.

La surveillance ultérieure a permis de noter une régression de l'exophtalmie et du chémosis avec une amélioration partielle de l'acuité visuelle.

DISCUSSION :

La fistule carotido-caverneuse est un shunt artério-veineux anormal entre le système carotidien et le sinus caverneux. Elle est le plus souvent unilatérale, cependant quelques cas de formes bilatérales ont été décrites (8, 9). Il existe différents types de fistules carotido-caverneuses selon leur étiologie (traumatique ou spontanée), leur débit

(bas ou haut) ou leur anatomie (directe versus durale, carotide externe versus interne) (4, 10). Les FCC peuvent avoir plusieurs étiologies ; elles peuvent être post-traumatiques, spontanées liées à la rupture intracaverneuse d'un anévrisme ou encore secondaires à une pathologie du sinus caverneux telle qu'une artériosclérose, une dysplasie fibromusculaire ou un syndrome d'Ehler-Danlos (4).

Une classification des FCC a été établie par Barrow et permet de différencier quatre types de shunt (tableau I). (figure 5).

Type	Shunt	Débit	Trajet
A	Direct	Elevé	Shunt entre la carotide interne et le sinus caverneux
B	Indirect	Bas	Shunt entre les branches méningées de la carotide interne et le sinus caverneux
C	Indirect	Bas	Shunt entre les branches méningées de la carotide externe et le sinus caverneux
D	Indirect	Bas	Shunt entre les branches méningées de la carotide interne, la carotide externe et le sinus caverneux

Tableau I : Classification des FCC selon Barrow (11)

La majorité des shunts sont de type A et représentent 70 à 90% des FCC, les autres types de fistules sont moins fréquentes (4, 10). Les FCC directes sont des fistules à haut débit qui sont majoritairement post-traumatiques (notamment dues à un traumatisme craniofacial important), mais peuvent parfois être spontanées (10, 12). Les FCC indirectes ou durales (de type B, C ou D) sont des shunts à bas débit qui surviennent de façon spontanée étant donné qu'elles soient liées à une anomalie durale ou à une pathologie médicale tel que le syndrome d'Ehlers-Danlos, une ostéogénèse imparfaite ou une artériosclérose (1).

Les FCC directes restent une pathologie peu fréquente. Cependant, malgré leur rareté, elles constituent une urgence thérapeutique du fait qu'elles mettent en jeu le pronostic vital et visuel (10). En effet, les FCC peuvent se compliquer de cécité, de la persistance d'une ophtalmoplégie partielle, d'une occlusion de la veine centrale de la rétine, d'une rétinopathie ischémique, d'une baisse de l'acuité visuelle ou d'un glaucome secondaire par fermeture de l'angle. Le pronostic vital peut également être mis en jeu par le risque d'hémorragie méningée, cérébrale ou sous-arachnoïdienne ou encore d'épistaxis foudroyant (10, 12, 13). Une épistaxis cataclysmique constitue à la fois un signe et une complication majeure de cette affection. En effet, l'hyperpression sanguine présente au sein de la muqueuse septale rend toute érosion responsable d'un saignement difficilement contrôlable pouvant enga-



ger le pronostic vital du patient (14).

Les mécanismes incriminés dans la genèse des FCC post-traumatiques sont de trois ordres : un arrachement sous l'effet du choc de rameaux artériels intracaverneux du siphon carotidien ; une rupture d'un anévrisme pré-existant ou bien une plaie artérielle secondaire au déplacement d'un fragment osseux dans les grands fracas craniofaciaux, et notamment les fractures de la base du crâne (2, 14).

Le délai d'apparition des symptômes est variable de quelques jours à quelques mois (2, 13). Pour notre patient, ce délai était de 19 jours.

La plupart des signes observés au cours d'une FCC résultent d'un shunt qui s'est créé entre deux systèmes : l'un à haut débit et l'autre à bas débit et c'est l'importance du flux à travers ce shunt qui déterminera le délai d'apparition du tableau clinique ainsi que sa gravité. L'importante différence de pression induit rapidement une dilatation et une hyperpression dans le sinus caverneux et ses affluents directs. C'est ce mécanisme qui sera à l'origine de l'ensemble du tableau clinique (7).

Les signes cliniques sont dominés par les manifestations ophtalmologiques, essentiellement l'exophtalmie qui est unilatérale et pulsatile associée à un chémosis, une dilatation du réseau veineux de la paupière supérieure donnant un aspect en « tête de méduse », une paralysie oculomotrice, un œdème palpébral, un ptosis, une kératite d'exposition, une hypertonie oculaire (liée à l'hyperpression dans les veines épisclérales), une dilatation des veines rétiniennes, des hémorragies intra-rétiniennes ou intra-vitréenne, un œdème papillaire et une baisse de l'acuité visuelle pouvant évoluer vers la cécité (2-5, 10). L'auscultation de la région périorbitaire et temporale retrouve un souffle intracrânien systolodiastolique disparaissant à la compression manuelle de l'artère carotide homolatérale au niveau du cou (14). Cette symptomatologie peut être absente ou bien méconnue dans les grands fracas craniofaciaux avec œdème important du visage et la FCC sera révélée plusieurs mois, voire plusieurs années après le traumatisme par des céphalées, des manifestations ophtalmologiques ou bien par une hémorragie cérébrale ou sous-arachnoïdienne (2, 3, 5).

Le diagnostic différentiel des FCC se fait généralement avec un syndrome de la fissure orbitaire supérieure, un syndrome de l'apex orbitaire, un hématome rétrobulbaire ou une thrombose du sinus caverneux (3).

L'exploration neuroradiologique constitue un temps essentiel dans le diagnostic et le traitement des FCC post-traumatiques. L'écho-Doppler couleur permet d'affirmer la fistule artérioveineuse en montrant au niveau des veines ophtalmiques un signal Doppler inversé dirigé vers

la face à renforcement systolique. Cet examen permet en outre un suivi non invasif après embolisation ou abstention thérapeutique (2). Le Doppler transcrânien (DTC) visualise directement la fistule avec une sensibilité de 95 % (2, 14). Cet examen peut renseigner sur la qualité des suppléances vasculaires cérébrales en réalisant une manœuvre de compression de l'artère carotide homolatérale. Ceci permet de donner une idée sur les perturbations hémodynamiques cérébrales pouvant survenir dans le cas où un axe carotidien interne serait sacrifié au cours de l'intervention (14). La tomодensitométrie (TDM) cérébrale et l'angio-TDM cérébrale recherchent des signes le plus souvent indirects de FCC telle qu'une exophtalmie, une sténose carotidienne par hématome de la loge caverneuse, des esquilles osseuses en regard du sinus caverneux (5), un bombement du sinus caverneux ou une dilatation de la veine ophtalmique supérieure qui est le signe indirect le plus évocateur de FCC (10).

L'IRM orbitaire en séquence T1 objective une dilatation de la veine ophtalmique supérieure et/ou un élargissement du sinus caverneux homolatéral. En séquence T2, elle permet une meilleure visualisation du sinus caverneux (10). La séquence de « temps de vol » de l'angio-IRM en trois dimensions objective la FCC avec une sensibilité de 83 % et une spécificité voisine de 100 % (5).

Cependant, l'artériographie reste l'examen clé de cette pathologie. Elle a un double intérêt : poser le diagnostic de certitude de FCC et permettre un geste thérapeutique dans le même temps interventionnel (2, 5).

En pratique courante, c'est la mise en évidence d'éléments évocateurs sur le DTC puis l'angio-TDM ou l'angio-IRM cérébrales qui posera l'indication de l'angiographie. Hmamouchi et al. préconisent même sa réalisation d'emblée devant une exophtalmie pulsatile associée à un souffle orbitaire systolodiastolique (2).

Depuis que Serbinenko a décrit son expérience avec les ballonnets détachables, le traitement endovasculaire est devenu le traitement de choix des FCC directes et peut être pratiqué par voie veineuse ou par voie artérielle (4, 10, 12). Les taux de succès rapportés de l'embolisation par ballonnets des FCC varient de 88 à 98% (12).

Le principe du traitement par neuroradiologie interventionnelle consiste en l'occlusion de la fistule par des ballonnets intravasculaires détachables ou des spires métalliques (coils) tout en respectant la perméabilité de l'axe carotidien (4, 5, 15, 16). L'abord peut se faire par voie artérielle pour les fistules basses et postérieures ou par voie veineuse rétrograde pour les fistules hautes et antérieures. Le traitement neurochirurgical par ligature artérielle, après la réalisation d'un test de clampage de l'artère carotide interne, garde sa place en cas d'échec de la



thérapeutique endovasculaire (4, 5).

La disparition totale des symptômes est fonction de leur sévérité ainsi que du délai de prise en charge. À l'issue du traitement, les signes oculaires tel que le chémosis, l'hémorragie sous-conjonctivale et l'exophtalmie régressent en quelques jours, alors que les troubles de l'oculomotricité et l'atrophie papillaire peuvent perdurer quelques mois, avec une correction lente et souvent partielle, laissant place à des séquelles parfois invalidantes (5). Dans notre cas, des séquelles fonctionnelles à type de baisse de l'acuité visuelle ont persisté et ceci serait lié au retard du geste d'embolisation et à la largeur de la fistule.

CONCLUSION

La FCC post-traumatique est une complication rare mais grave pouvant engager le pronostic fonctionnel (baisse de l'acuité visuelle, diplopie, ophtalmoplégie, cécité) et vital (hémorragie intracérébrale ou sous-arachnoïdienne, épitaxis foudroyant) (2, 3). Ainsi, il est nécessaire de souligner le caractère urgent du traitement dès que le diagnostic est posé. Le diagnostic est clinique ; il sera évoqué devant toute exophtalmie uni- ou bilatérale survenant après un traumatisme crânien et doit être confirmé et affiné par l'imagerie (10). Le traitement a largement bénéficié de l'apport de la radiologie interventionnelle (10). En effet, l'artériographie et l'embolisation en un seul temps, par ballonnet largable ou par coils, ont considérablement amélioré le pronostic (2).

REFERENCES

- 1) Fattahi TT, Brandt MT, Jenkins WS et al. Traumatic carotid-cavernous fistula: Pathophysiology and treatment. *J Craniofac Surg.* 2003; 14: 240-6.
- 2) Hmamouchi B, Rakaa A, Alhyene I, Bouderkha MA, Abassi O. Post-traumatic carotid-cavernous fistula. *Ann Fr Anesth Reanim.* 2001; 20(5): 494-7.
- 3) Paza AO, Farah GJ, Passeri LA. Traumatic carotid cavernous fistula associated with a mandibular fracture. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2008 ; 37(1): 86-9.
- 4) Seruga T. Endovascular treatment of a direct post-traumatic carotid-cavernous fistula with electrolytically detachable coils. *Wien Klin Wochenschr.* 2006; 118(2): 80-4.
- 5) Gagnon N, Debien B, Baccialone J, Perez JP, Pats B. Carotid-cavernous fistula after traumatic brain injury: an unusual vascular complication. *Ann Fr Anesth Reanim.* 2006; 25(8): 891-4.
- 6) Heymans O, Nélissen X, Gilon Y et al. Les complications vasculaires des traumatismes craniofaciaux. *Rev Stomatol Chir Maxillofac.* 2002; 103(5): 281-7.
- 7) Phatouros CC, Meyers PM, Dowd CF et al. Carotid artery cavernous fistulas. *Neurosurg Clin N Am.* 2000; 11: 67-84.
- 8) Liang W, Xiaofeng Y, Weiguo L et al. Bilateral traumatic carotid cavernous fistula: The manifestations, transvascular embolization and prevention of the vascular complications after therapeutic embolization. *J Craniofac Surg.* 2007; 18(1): 74-7.
- 9) Luo CB, Teng MMH, Chang FC et al. Bilateral traumatic carotid-cavernous fistulae: Strategies for endovascular treatment. *Acta Neurochir (Wien).* 2007; 149: 675-80.
- 10) Sellam M, Milazzo S, Deramond H. Traumatic carotid-cavernous sinus fistula: a case study. *J Fr Ophtalmol.* 2005; 28(7): 772-9.
- 11) Barrow DL, Spector RH, Braun IF et al. Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. *J Neurosurg.* 1985; 62: 248-56.
- 12) Gupta AK, Purkayastha S, Krishnamoorthy T et al. Endovascular treatment of direct carotid cavernous fistulae: a pictorial review. *Neuroradiol.* 2006; 48: 831-9.
- 13) Argo A, Bono G, Zerbo S et al. Post-traumatic lethal carotid-cavernous fistula. *J Forensic Legal Med.* 2008; 15: 266-8.
- 14) Dupoirieux L, Courbes P, Jammet P et al. Apport de l'imagerie médicale moderne dans les fistules carotido-caverneuses post-traumatiques: A propos d'un cas. *Rev Stomatol Chir Maxillofac.* 1993; 94: 371-4.
- 15) Ahn JY, Lee BH, Joo JY et al. Stent-assisted Guglielmi detachable coil embolisation for the treatment of a traumatic carotid cavernous fistula. *J Clin Neurosci.* 2003; 10(1): 96-8.
- 16) Kobayashi N, Miyachi S, Negoro M et al. Endovascular treatment strategy for direct carotid-cavernous fistulas resulting from rupture of intracavernous carotid aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2003; 24: 1789-96.