

0.035-inch Non-Detachable Fibered Coilで Internal Trappingを施行したCarotid Blowout Syndrome : 症例報告

石黒友也¹⁾ 小宮山雅樹¹⁾ 山本直樹¹⁾ 國廣誉世¹⁾
中村一仁¹⁾ 吉村政樹¹⁾ 大石建三²⁾

Carotid Blowout Syndrome Treated by Internal Trapping using 0.035-inch Non-Detachable Fibered Coils: case report

Tomoya ISHIGURO¹⁾ Masaki KOMIYAMA¹⁾ Naoki YAMAMOTO¹⁾ Noritsugu KUNIHIRO¹⁾
Kazuhito NAKAMURA¹⁾ Masaki YOSHIMURA¹⁾ Kenzo OISHI²⁾

1) Department of Neurosurgery, Osaka City General Hospital

2) Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Osaka City General Hospital

●Abstract●

Objective: We report a case of carotid blowout syndrome (CBS) treated by internal trapping using 0.035-inch non-detachable fibered coils.

Case presentation: A 54-year-old man presented with massive hemorrhage from a skin defect in the neck 12 years after radical neck dissection and chemoradiation therapy for a right submandibular gland adenocarcinoma. Emergency tracheostomy was performed and gauze compression resulted in hemostasis. CT angiography revealed a pseudoaneurysm of the right cervical carotid artery. In addition, the right external carotid artery was occluded. Under the diagnosis of impending CBS, we performed endovascular treatment on an emergency basis. Since the patient tolerated temporary balloon occlusion of the right common carotid artery, internal trapping using 0.035-inch non-detachable coils was performed under proximal flow control. The right carotid artery was successfully occluded without any neurological deficit.

Conclusion: Internal trapping using 0.035-inch non-detachable fibered coils is an effective treatment for CBS.

●Key Words●

carotid blowout syndrome, internal trapping, 0.035-inch non-detachable fibered coil

1) 大阪市立総合医療センター 脳神経外科

2) 同 口腔外科

<連絡先: 石黒友也 〒534-0021 大阪市都島区都島本通2-13-22 E-mail : m6828575@msic.med.osaka-cu.ac.jp>

(Received May 19, 2009 : Accepted December 14, 2009)

緒言

Carotid blowoutは頸動脈破裂を意味し⁶⁾、頭頸部癌の致死合併症の一つである¹⁻¹⁰⁾。危険因子には全頸部郭清術や放射線照射の既往、腫瘍再発、創部感染、咽頭皮膚瘻などがある^{1-4, 6-10)}。治療は血管内治療による頸動脈閉塞やcovered stentが第一選択となる^{1,2,4,5,7,8)}。頸動脈閉塞にはdetachable balloonや電気離脱式coilを使用するのが一般的であるが^{1,3,4,7,10)}、現状ではdetachable balloonは入手不可能である。一方、電気離脱式coilのみでは閉塞に難渋することが稀にある。我々は顎下腺癌再発に伴う

carotid blowout syndrome (CBS) に対して0.035-inch non-detachable fibered coilを使用してinternal trappingを行った1例を経験したので文献的考察を加えて、その有用性を報告する。

症例呈示

症例: 54歳, 男性。

主訴: 皮膚欠損部からの大量出血。

既往歴・家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 42歳時に右顎下腺癌に対して全頸部郭清術が施行され、術後に50 Gyの局所放射線照射とシスプラチン、

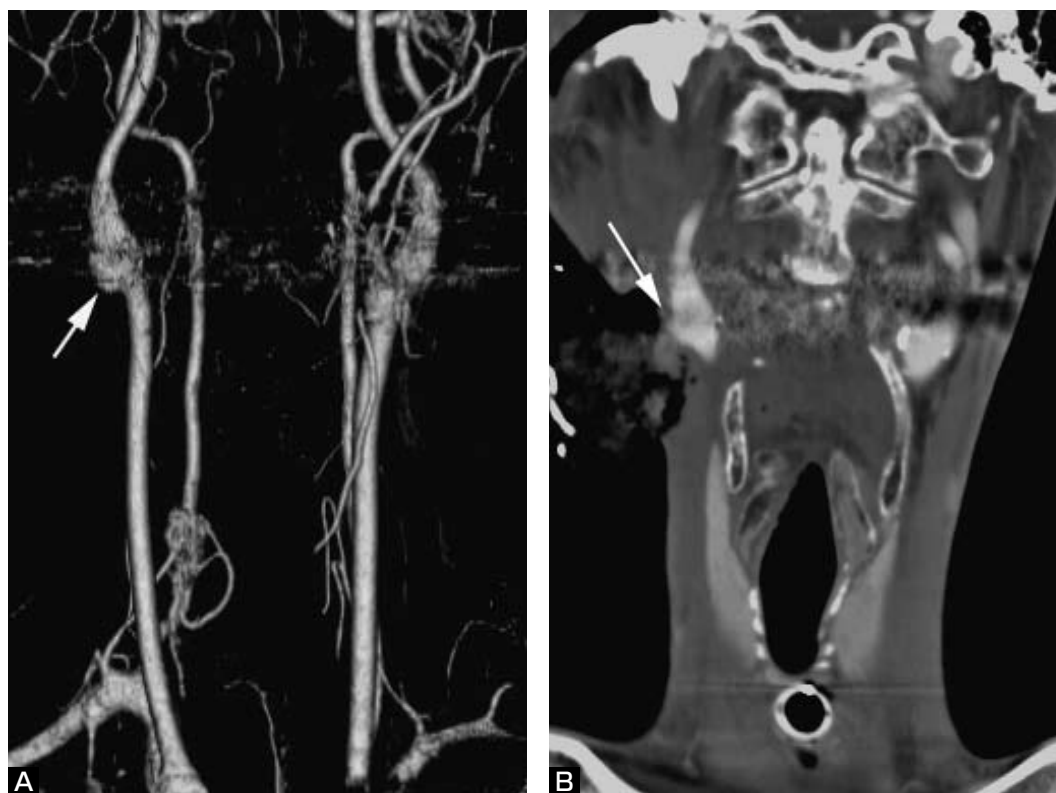


Fig. 1 Three-dimensional CT angiogram (A: anteroposterior (AP) view) and multiplanar reconstruction image (B: coronal view) on the day of admission showing a pseudoaneurysm (arrows) of the right cervical carotid artery, which is immediately beneath a skin defect.

塩酸ドキソルピシンなどによる化学療法が行われた。49歳頃から右下顎部に皮膚欠損を認めるようになった。皮膚欠損部は徐々に拡大し、生検で局所再発が確認された。また、49歳時に肺転移も指摘されたが治療適応がないと判断され、保存的に経過観察されていた。54歳時に前医を受診中、突然に皮膚欠損部から大量出血を来した。緊急で気管切開が行われ、ガーゼによる圧迫で一旦止血が得られた。しかし6日後に再出血を来し、再びガーゼ圧迫が行われた。2回の出血に対して赤血球濃厚液が計12単位輸血された。前医でこれ以上の治療は困難と判断され、初回出血から12日後に当院口腔外科に転院となり、転院当日に当科へコンサルトされた。

入院時現症：血圧は80/50mmHg、脈拍は59回/分であった。右下顎から頸部にかけての皮膚欠損部は止血に用いたガーゼがバンテージで固定されていた。神経学的には意識清明で、右ホルネル徴候を認めるのみであった。

入院時血液検査：ヘモグロビン10.9g/dl、ヘマトクリット34.6%で、血小板・凝固系は血小板数20万個/mm³、prothrombin time-international normalized ratio (PT-INR) 1.17、activated partial thromboplastin time (APTT)

36秒と異常はなかった。また他に特記すべき所見はなかった。

入院後経過：Impending CBSに対して緊急に治療が必要と判断し入院当日にCT angiographyを施行したところ、右頸部頸動脈に仮性動脈瘤を認め、そのdomeは皮膚欠損部に接していた (Fig. 1A, B)。また胸部レントゲンでは多発性の肺転移病変を認めた。引き続き局所麻酔下にballoon occlusion test (BOT) および血管内治療を行った。

血管内治療：両側大腿動脈に7 Frおよび4 Frシースを留置した。血管撮影ではCT angiography所見と同様に右頸部頸動脈に仮性動脈瘤を認めた (Fig. 2A, B)。右外頸動脈は閉塞しており、同側内頸動脈のinferolateral trunkから逆行性に頸動脈が描出された。7 Frシースから7 Fr Patlive (Terumo Clinical Supply, Gifu) を右総頸動脈に、4 Frシースからpig tailカテーテルを上行大動脈に留置した。Activated clotting time (ACT) が200秒以上になるように全身ヘパリン化を行い、総頸動脈でBOTを施行した。20分間の閉塞で神経症状の出現はなかった。またpig tailカテーテルから右総頸動脈遮断下



Fig. 2 Right common carotid angiograms (A : AP and B : lateral views) before the intervention demonstrating a pseudoaneurysm (arrows).

に行ったpanangiogramでも大脳半球の描出に左右差を認めなかったため、右頸動脈閉塞に対する耐性ありと判断し、引き続きinternal trappingを行った。まずPatliveでproximal flow controlを行い、それと同軸にTempo-4 (Terumo, Tokyo) を右内頸動脈錐体骨部まで仮性動脈瘤を越えて誘導した。皮膚欠損部の頸動脈は脆弱である可能性があるため、その遠位および近位側にhelical typeの0.035-inch non-detachable fibered coil (Cook, Bloomington, Ind., USA) を計32本留置して右頸動脈を閉塞した (Fig. 3A-C)。

術後経過：新たな神経症状は認めず、術直後よりアスピリン100mgを投与して、ヘパリン15000単位/日の持続投与を開始した。しかし、術翌日にストレス性と考えられる十二指腸球部の潰瘍穿孔を来して開腹手術を要したため、アスピリンとヘパリンは中止した。その後も神経症状の出現はなく、術7日後のMRI拡散強調画像で虚血性変化は認めなかった。また再出血もなく経過していたが、術後58日目に肺炎を発症し、その2日後に呼吸不全で死亡した。

考 察

Carotid blowoutは頸部の頸動脈破裂を意味する用語として1965年にKetchamら⁶⁾が最初に使用した。当初は出血例のみを意味していたが、その後に頸動脈が露出した非出血例にも用いられるようになり^{4,10)}、1996年にChaloupkaら¹⁾はそれらを総括してcarotid blowout syndrome (CBS) と呼ぶことを提唱した。CBSは頭頸部癌の致死合併症の一つであり¹⁻¹⁰⁾、その頻度は3～5%程度とされる^{3,6,9,10)}。危険因子には全頸部郭清術や放射線照射の既往、腫瘍の局所再発のほか、創部感染や咽頭皮膚瘻がある^{1-4,6-10)}。手術による外膜損傷だけでなくvasa vasorumの閉塞、外膜の線維化、中膜の弾性線維の破壊などといった血管壁の放射線障害によって引き起こされる動脈壁の脆弱化、腫瘍や感染の動脈壁への浸潤などが原因とされる^{4,7,8,9)}。CBSの臨床症状はacute, impending, threatenedの3つに分類され^{1,3,4)}、acute CBSはコントロール不能の出血を指し、impending CBSは本症例のように一旦出血したが、何らかの形で止血されている状態で、threatened CBSは皮膚欠損により頸

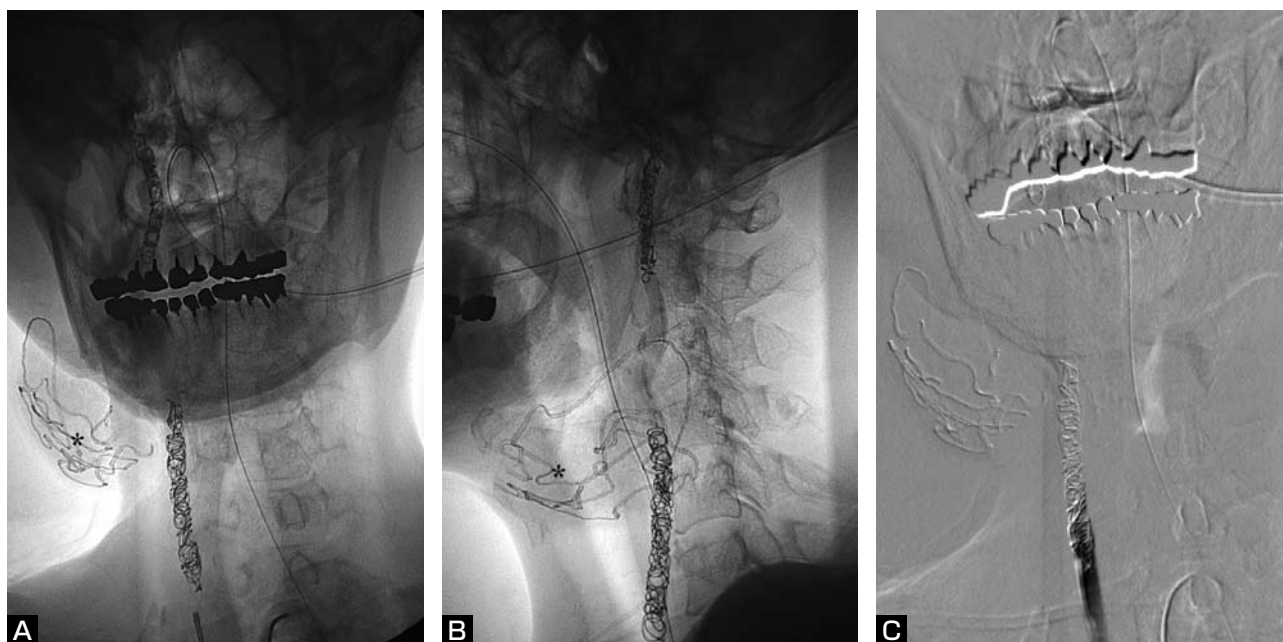


Fig. 3 After the internal trapping, fluoroscopic images (A : AP and B : lateral views) showing the coils deposited in the right carotid artery. X-ray detectable gauzes (asterisks) used for hemostasis are observed. C : Right common carotid angiogram (AP view) demonstrating occlusion of the right carotid artery.

動脈が露出しており、出血予防のために何らかの治療を要する状態である。前2者は緊急治療が必要であり、threatened CBSは待機的に治療が可能である³⁾。

CBSに対する治療は1980年代までは頸動脈結紮が一般的であったが、全頸部郭清術後のため創部の癒着があり、また放射線照射後のことが多いために手術は困難であった。さらに術前にBOTができないことが多く、神経学的合併症が60%に起こり、死亡が40%と予後不良であった^{1,4,6,8,9)}。1990年頃からは血管内治療による頸動脈閉塞によって治療成績は向上した^{1,2,4)}。特にinternal trappingによる止血は確実性が高く、Changら³⁾はproximal occlusionでは5例中3例に再出血を認めたのに対して、internal trappingの8例はいずれも再出血を認めなかった。頸動脈閉塞に先立ってBOTが行われるが、遅発性の虚血性合併症の予測は困難であり、またacute CBSではBOTが不可能なことも多い^{1,2,4,8)}。そのため頸動脈閉塞は虚血性合併症を15~20%に認める^{1,8)}。そこで近年はcovered stentを用いた再建術が行われている^{2,5,8)}。しかし術前に十分な抗血小板剤投与が不可能であるため血栓塞栓性合併症やstent閉塞が問題となる^{2,3)}。さらに再出血を20~50%に認めている^{2,3,5,8)}。再出血の原因は再発腫瘍や感染、放射線壊死による病的な血管の範囲がcovered stentで治療した部分よりも広がっているためと

考えられている^{2,3,7)}。頸動脈閉塞とcovered stentを用いた再建術の選択にはBOTによる虚血耐性の評価が重要である^{1,3,4)}。耐性がない場合はcovered stentを選択せざるを得ないが、耐性がある場合には一定の見解は得られていない。本症例は患側外頸動脈が閉塞していたので、総頸動脈でのBOTが可能であった。外頸動脈は全頸部郭清術の時点では温存されていたが、血管壁の放射線障害や腫瘍の再発、進展によって、その後の経過中に閉塞したと考えられた。BOTは20分間の閉塞で神経症状の出現がなく、総頸動脈遮断下で撮影したpanangiogramで大脳半球の描出に左右差を認めなかったことから耐性ありと判断して頸動脈閉塞を行った。頸動脈閉塞にはdetachable balloon, coil, N-butylcyanoacrylate (NBCA)が使われる^{1,3,4,7,10)}。Detachable balloonが入手できない現状では電気離脱式coilを使用するのが一般的であるが、電気離脱式coilのみでは閉塞に難渋することが稀にある。またCBSでは血管撮影上は問題がないようにみえても、破裂部位周囲の頸動脈にも血管壁の障害を来している可能性があり、coilを留置しても後日、血管壁の破綻によってcoilが血管外に出てくることがある⁷⁾。そこで本症例では0.035-inch non-detachable fibered coilを使用して、皮膚欠損部の頸動脈にはcoilを留置せずに、確実に健常血管と考えられる部位までcoilをlong segmentに留

置してinternal trappingを行った。0.035-inch non-detachable fibered coilは外径が0.035-inchと太く、polyethylene terephthalate製のfiberを有しているため電気離脱式coilより塞栓効果が高く、detachable balloonやNBCAに比べ使用が容易である。逆に押し出し式coilであるのでdistal migrationが危惧されるが、proximal flow controlを併用することでmigrationは防止可能である。また0.035-inch non-detachable fibered coilの価格は電気離脱式coilの約1/10で、医療経済的にも有益である。本症例では全て0.035-inch non-detachable fibered coilを用いてinternal trappingを行ったが、電気離脱式coilでinternal trappingを行い、最後にdetachable balloonの代わりに0.035-inch coilを留置するといった方法も考えられる。

結 語

CBSは癌末期の症例に起こりやすいため、積極的に治療を行っても予後は1年前後と不良であり³⁾、治療には低侵襲性と確実性が求められる。CBSに対する頸動脈閉塞に0.035-inch non-detachable fibered coilを使用したinternal trappingは有用な方法と考えられた。

文 献

- 1) Chaloupka JC, Putman CM, Citardi MJ, et al: Endovascular therapy for the carotid blowout syndrome in head and neck surgical patients: diagnostic and managerial considerations. AJNR 17:843-852, 1996.
- 2) Chang FC, Lirng JF, Luo CB, et al: Carotid blowout syndrome in patients with head-and-neck cancers: reconstructive management by self-expandable stent-grafts. AJNR 28:181-188, 2007.
- 3) Chang FC, Lirng JF, Luo CB, et al: Patients with head and neck cancers and associated postirradiated carotid blowout syndrome: endovascular therapeutic methods and outcomes. J Vasc Surg 47:936-945, 2008.
- 4) Citardi MJ, Chaloupka JC, Son YH, et al: Management of carotid artery rupture by monitored endovascular therapeutic occlusion (1988-1994). Laryngoscope 105:1086-1092, 1995.
- 5) Hoppe H, Barnwell SL, Nesbit GM, et al: Stent-grafts in the treatment of emergent or urgent carotid artery disease: review of 25 cases. J Vasc Interv Radiol 19:31-41, 2008.
- 6) Ketcham AS, Hoye RC: Spontaneous carotid artery hemorrhage after head and neck surgery. Am J Surg 110:649-655, 1965.
- 7) Kiyosue H, Okahara M, Tanoue S, et al: Dispersion of coils after parent-artery occlusion of radiation-induced internal carotid artery pseudoaneurysm. AJNR 25:1080-1082, 2004.
- 8) Lesley WS, Chaloupka JC, Weigle JB, et al: Preliminary experience with endovascular reconstruction for the management of carotid blowout syndrome. AJNR 24:975-981, 2003.
- 9) Maran AG, Amin M, Wilson JA: Radical neck dissection: a 19-year experience. J Laryngol Otol 103:760-764, 1989.
- 10) Sanders EM, Davis KR, Whelan CS, et al: Threatened carotid rupture: a complication of radical neck surgery. J Surg Oncol 33:190-193, 1986.

要 旨

JNET 3:198-202, 2009

【目的】 Carotid blowout syndrome (CBS)に対して0.035-inch non-detachable fibered coilでinternal trappingを行った1例を報告する。**【症例】** 54歳、男性。42歳時に右顎下腺癌に対して全頸部郭清術と放射線化学療法が行われた。49歳頃より右下顎部に皮膚欠損と局所再発を認め、54歳時に同部から大量出血を来した。圧迫で止血が得られ、緊急で血管内治療を行った。血管撮影では右頸部頸動脈に仮性動脈瘤を認めた。Balloon occlusion testで耐性を確認した後に0.035-inch non-detachable fibered coilを使用して internal trappingを行った。術後に神経症状の出現はなかった。**【結語】** CBSに対する頸動脈閉塞に0.035-inch non-detachable fibered coilを使用したinternal trappingは有用な方法と考えられた。