

Persistent proatlantal arteryを合併した症候性 頸部頸動脈狭窄症に対するCAS：症例報告

広田暢夫 保格宏務 加藤晶人 桜井 孝
三代貴康 露無松平

Carotid artery stenting for symptomatic stenosis of cervical carotid artery with a persistent proatlantal artery: case report

Nobuo HIROTA Hiromu HOKAKU Akihito KATOH Takashi SAKURAI
Takayasu MIYO Matsutaira TSUYUMU

Department of Neurosurgery, Yokosuka Municipal General Hospital Uwamachi

●Abstract●

Objective: To report a case of symptomatic internal carotid artery stenosis with a persistent proatlantal artery (PPA), which was treated by carotid artery stenting (CAS) with a filter device by means of proximal occlusion of the common carotid artery (CCA) and the external carotid artery (ECA).

Case presentation: A 77-year-old man suffering from loss of consciousness was referred to our hospital. Diffusion-weighted image showed a left cerebral infarction and MR angiography revealed a PPA. PPA type 1 was confirmed by 3D-CT angiography and digital subtraction angiography revealed the carotid stenosis, located just proximal to the origin of the PPA in the left internal carotid artery (ICA). Since the stenosis was more than 50% and the patient was elderly, CAS was scheduled. To protect both the ICA and the PPA, a guiding catheter with balloon was employed to occlude the CCA and the ECA simultaneously and to induce blood flow from the PPA to the ICA. Under such conditions, a filter device was positioned in the ICA and CAS was done in an orderly manner without any complications.

Conclusion: To our knowledge, this is the first reported case of PPA treated by CAS with a filter device by proximal occlusion both of CCA and ECA which induced blood flow from ICA to PPA.

●Key Words●

CAS, cervical carotid artery stenosis, embolic protection, persistent proatlantal artery

横須賀市立うわまち病院 脳神経外科

<連絡先：広田暢夫 〒238-8567 神奈川県横須賀市上町2-36 E-mail : nobuo@bb.mbn.or.jp>

(Received July 21, 2010 : Accepted September 9, 2010)

緒言

遺残前環椎動脈 (persistent proatlantal artery : PPA) は、内頸動脈または外頸動脈と椎骨動脈を結ぶ稀な胎生期遺残動脈吻合である。今回PPAと内頸動脈の分岐部の近位部に生じた症候性血管狭窄に対しcarotid artery stenting (CAS) を施行した症例を経験した。PPAを合併する頸動脈狭窄症に対するCASの報告は散見されるが⁸⁾、我々が渉猟した限りではバルーン付ガイディングカテーテルを利用したCASの報告はなく、本症例に用いたembolic protectionのstrategyも含め報告する。

症例呈示

患者：77歳男性。

主訴：意識障害。

既往歴：高血圧症、高脂血症にて内服加療中。

現症：市民公開講座受講中に意識消失しているところを発見され、当院に救急搬送された。

入院時神経症状：意識清明、四肢麻痺なく神経学的に異常はなかった。バイタルサインにも異常を認められなかった。

心血管系の精査にて異常なく、頭部CTも異常を認めなかったが経過観察のため入院となった。翌日の頭部



Fig. 1

A : Diffusion weighted MR image shows high intensity area in the left occipital lobe.

B : MR angiography demonstrates a persistent primitive artery derived from the left internal carotid artery (ICA) (arrows) and stenosis of the ICA which is located just proximal to the artery (thick arrow). A thick right vertebral artery is also observable.

MRI, 拡散強調画像にて新鮮梗塞が左後頭葉に認められた (Fig. 1A). MRAでは左頸部内頸動脈より分岐する遺残原始動脈が対側の椎骨または脳底動脈に吻合する所見が認められ, その分岐部直前に狭窄が存在した (Fig. 1B). 頸動脈エコーにて同狭窄部のplaqueはlow echoicでありsoft plaqueと考えられ, 流速はVmaxが200cm/secと亢進していた. 以上より症候性頸動脈狭窄症を疑い脳血管造影を施行した.

脳血管造影所見: 左総頸動脈撮影で左頸部内頸動脈より分岐し, 椎骨脳底動脈系に吻合する遺残原始動脈を認め, その分岐部直前に狭窄を認めた. 最大狭窄部はNASCETの測定法にて54%であった (Fig. 2A,B). 同側椎骨動脈の起始部は確認できなかったため造影は施行せず, 右椎骨動脈は遺残原始血管と同等の血管径を持ち狭窄は認められなかった.

造影CT所見: 3D-CTAにて, この遺残原始動脈は舌下神経管を通過せず大孔を通ることが確認され, PPAと診断した (Fig. 3)^{3,12)}.

1. 治療のstrategy

50%以上の症候性頸部頸動脈狭窄であること, 頸部頸動脈狭窄症の治療について内科治療, 外科治療を含めた治療方法の説明を行ったところCASを希望されたため, 治療計画を立てた. 通常のカSと異なる点はPPAにdebrisが飛散しないように工夫する必要があることであり, 以下のようなstrategyで望むこととした.

- (1) PPAの起始部にも狭窄を認めたため, 内頸動脈とPPAのdouble stentingも考えられたが, 対側椎骨動脈が十分に太く, 仮にPPAが閉塞しても神経症候は惹起されないと考えられたこと, 恐らくステントのストラットを通してPPAへの血流は保たれるであろうと考えられること, 高齢者であり煩雑な手技によるリスクと治療時間の増加を避けたいことなどから, 通常の手技に近い形でCASを行うこととした.
- (2) debrisを飛ばさずにCASを施行するにあたって, バルーン付ガイディングカテーテルにて外頸動脈起始部で外頸動脈と総頸動脈を同時に閉塞させ, 外頸動



Fig. 2 Stenosis of the ICA is shown on both 3D-DSA (A) and DSA (B) images (arrows).

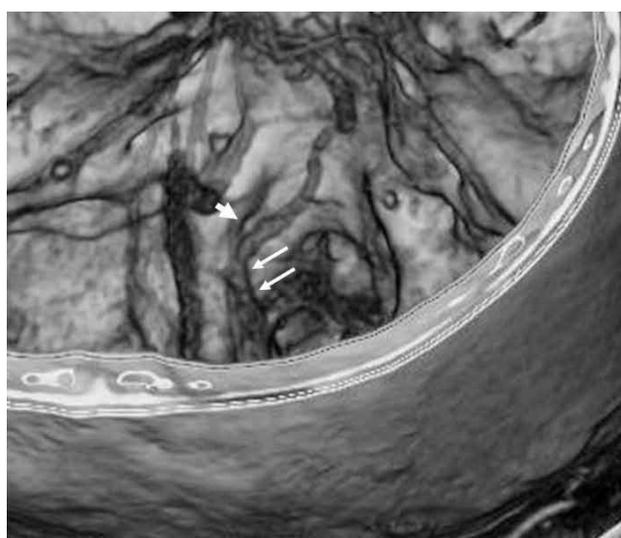
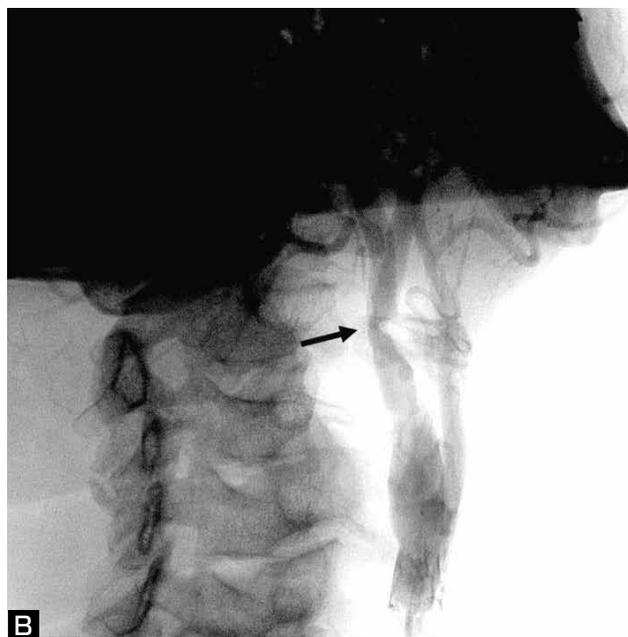


Fig. 3 3D-CT angiography visualizes the PPA running through the foramen magnum to the brain (arrows) and the hypoglossal canal (thick arrow).

脈の血流も遮断すれば、内頸動脈とPPAの血流の関係にのみ配慮すればいいことになるが、その場合の血行動態として以下の3パターンが考えられた。

- 1) 内頸動脈、PPA両血管ともflowが停止する。
- 2) PPAから内頸動脈方向にreversal flowが起こる。
- 3) 内頸動脈からPPA方向にreversal flowが起こる。

1) の場合は内頸動脈とPPAの血圧が拮抗している場合と考えられ、CAS後ガイディングカテーテルから及び血栓吸引用カテーテルにてdebrisを十分吸引するこ

とが可能である。

2) の場合、内頸動脈にAngioguardをおいた通常のCASの手技で行うことにより、PPAからのreversal flowによりdebrisはすべて内頸動脈に流れ、Angioguardにてキャッチされる。

3) の場合、Parodi変法による対処を検討した。バルーン付ガイディングカテーテルにて総頸動脈ごと外頸動脈を遮断し、PPAには4Frカテーテルを留置しPercusurgeにてembolic protectionし、内頸動脈にもAngioguardを留置し手技を遂行し、stenting終了後4Frカテーテルからdebrisを吸引した後、バルーンをdeflationする。

2. CAS

PPAの対側椎骨動脈が十分太いことから、上記2)の可能性が一番高いと考えられた。そのため9Frのバルーン付カテーテルにてまず閉塞試験を行い、3)の血行動態であった場合は10.5Frのバルーン付カテーテルに変更する予定で望んだ。局所麻酔下に、右大腿動脈に9Frロングシースを挿入し、全身ヘパリン化にてactivated clotting time (ACT) 300sec以上にし、9Frパトリーブ(テルモ・クリニカルサプライ株式会社、岐阜)を6Fr、130cm COUNT DOWN6(メディキット株式会社、東京)とのcoaxialにて左総頸動脈に導入し、バルーンが外頸動脈も閉塞できるよう位置決めを行った。バルーンをinflationし総頸動脈と外頸動脈を閉塞し造影したところ、造影剤は内頸動脈にのみ流入し、PPAからの血

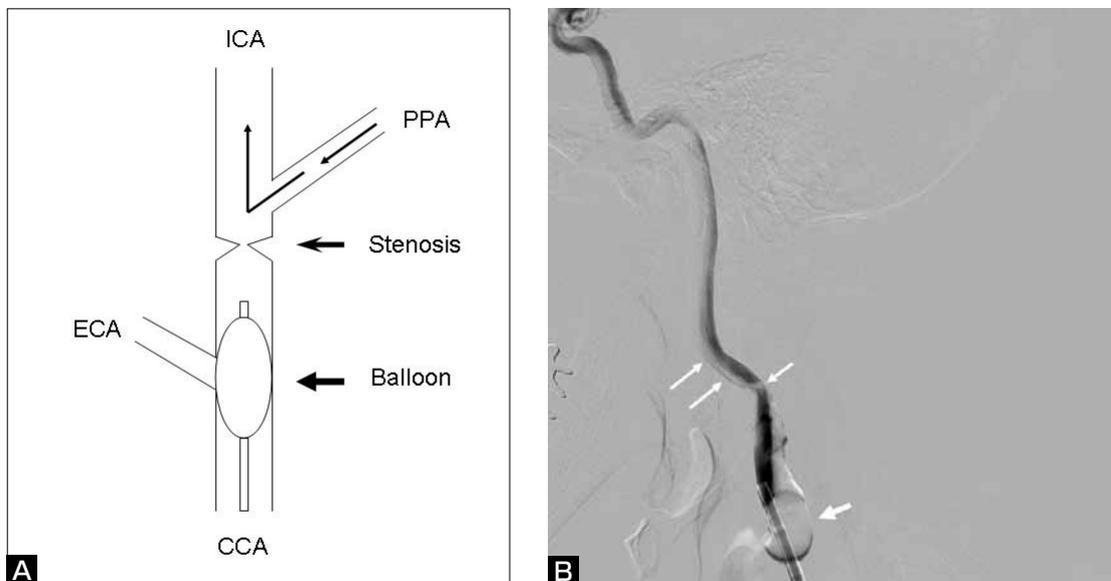


Fig. 4

- A : The schema shows the guiding catheter with balloon occluding not only the common carotid artery (CCA), but also the external carotid artery (thick arrow) and induced blood flow from the PPA to the ICA under the condition of proximal occlusion (thin arrows).
- B : The intraprocedural DSA shows the inflated balloon (thick arrow) and the laminar flow from the origin of the PPA to the ICA (thin arrows).

流によるlaminar flowが認められた。PPAおよび外頸動脈への造影剤の流入は認められなかった (Fig. 4A,B)。血流はPPAから内頸動脈に向かっていることが確認されたため、前記 (2) のstrategyにてCASを行った。バルーンにて総頸動脈、外頸動脈を同時に閉塞し、PPAにdebrisが飛ぶことを防ぐため造影剤のpower injectionを避け、ガイドラインカテーターからのヘパリン加生食の還流を最小限とし手技を行った。血管造影からの血管径計測により選択した6mmのAngioguard XP (Cordis, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA) をlesion crossしSubmarineRapid (INVATEC, Roncadelle, BS, Italy) 3.5mm×30mmによりpredilatationを施行し、Precise (Cordis, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA) 10mm×40mmにてstenting, postdilatationをAmiia (Cordis, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA) 5.5mm×20mmにて施行した。7Frエリミネート(テルモ・クリニカルサプライ, 岐阜)にてAngioguard直前, ステント付近, ガイドラインカテーター付近でdebrisを吸引後, Angioguardを回収し手技を終了した。エリミネートにて回収した血液には中等度のdebrisが回収されていた。術後の血管撮影にて狭窄部の拡張は良好であり (Fig. 5), Angioguardを回収し手技を終了した。術後合併症はなく経過良好でありDay 4



Fig. 5 A DSA image shows complete resolution of the stenosis and the opacified PPA.

に独歩退院した。6ヵ月後のDSAでは再狭窄は認められず、PPAの血流も良好であった。約1年経過の時点で再梗塞やその他の合併症を認めていない。

考 察

頸動脈系と椎骨脳底動脈系とを結ぶ遺残血管吻合としては、persistent primitive trigeminal artery (PPTA) や persistent primitive hypoglossal artery (PPHA) などの carotid basilar anastomosis のほかに PPA と呼ばれる頸動脈椎骨動脈吻合 (carotid-vertebral anastomosis) が知られているが、PPTA や PPHA に比べ PPA はより頻度が低い¹⁰⁾。胎生期の頸動脈系と椎骨脳底動脈系との間には通常 8 対の吻合血管が見られ、このうち最も頭側 (1 番目) の anastomosis は primitive proatlantal, あるいは suboccipital artery と呼ばれ、残りの (2 番目から 8 番目) anastomosis は cervical intersegmental artery (1 番から 7 番) と呼ばれている^{9,10)}。これらの内、first intersegmental space を通る primitive proatlantal artery が残存することで生じる遺残血管吻合が proatlantal artery, type 1 であり、内頸動脈あるいは外頸動脈の近位部と椎骨動脈とを結ぶ¹³⁾。内頸あるいは外頸動脈より分岐した後、外側に向かいながら上行し環椎の横突起外側から大後頭孔に入った後、椎骨動脈の 4th segment と吻合する。通常吻合部近位部の椎骨動脈は低形成か無形成を示し、また対側椎骨動脈の無あるいは低形成が見られることもある¹¹⁾。これに対し second intersegmental space を通る first cervical intersegmental artery が残存することで生じる遺残血管吻合が proatlantal artery, type 2 であり外頸動脈近位部から分岐し、環椎下面に沿って後方に向かい、環椎の横突起孔を通過し頭蓋外で椎骨動脈の 3rd segment と吻合する。type 1 と同様、同側の椎骨動脈の無、または低形成を伴うことがある^{5,11,13)}。本症例では、PPHA と PPA との鑑別方法として 3D-CTA およびその造影 thin slice 画像にて PPA と診断した¹¹⁾。PPA に限らず PPHA を含め、遺残原始動脈を伴う頸部頸動脈狭窄症に対し血行再建術を行う場合、その解剖学的特殊性から通常の手技と異なる方法をとる必要がある。

PPA や PPHA を合併する頸部頸動脈狭窄に対して CAS を施行する時、本例のように遺残動脈の近位側に狭窄を有する場合には、通常の filter device による内頸動脈の embolic protection だけでは遺残動脈に debris が流入することは避けられない。Morales らは PPA を合併した頸部頸動脈狭窄症に対し通常の内頸動脈に対する embolic protection のみで CAS を施行し、一過性ではあるが PPA に流入した debris のためと思われる片麻痺を経験し、PPA への embolic protection の重要性を強調して

いる⁸⁾。また PPHA を合併する CAS において、総頸動脈、外頸動脈、PPHA をそれぞれバルーンにて embolic protection する方法にて CAS を合併症なく施行した報告がある⁴⁾。また PPA や PPHA 合併症例に carotid endarterectomy (CEA) を施行する場合で後方循環が遺残原始動脈に依存している場合、内頸動脈に術中シャントを置くのみならず、遺残原始動脈にもシャントをおく必要がある。Megyesi らは PPHA のみに脳底動脈が灌流されている症例の CEA において、術中シャントを使用し血管遮断中 PPHA の血流を保つ処置を施行したとしている。PPA を合併した症例に対する CEA の報告でも同様の手技にて手術を施行している²⁾。また Lie は PPHA に並存する椎骨動脈は対側は hypoplasia, 同側は hypoplasia または aplasia であることが多いとしており⁶⁾、CEA を施行する場合には内頸動脈および PPHA の両方に術中シャントが必要な症例が多く存在することになると考えられる¹⁾。これらの報告を総合すると、遺残原始動脈を合併する頸動脈狭窄病変は CEA, CAS 共に通常より high risk であり、何らかの追加の処置が必要となることを念頭に置く必要がある。CEA か CAS かを選択する場合、どちらがよりリスクが高いか個々の症例について検討した上で適応を決定する必要がある。本症例では狭窄が 50% 以上の症候性頸動脈狭窄であり CAS の適応であること、77 歳という高齢でありまた患者の希望を考慮し CEA ではなく CAS を行うこととした。我々は、結果的に外頸動脈を含めた総頸動脈のバルーン付カテーテルによる遮断により内頸動脈と PPA の圧格差が生じ、PPA から内頸動脈への reversal flow が形成されたため、また対側椎骨動脈が十分太く、仮に PPA が閉塞したとしても対側椎骨動脈により後方循環の血流は保たれると考えられたため、バルーンによる外頸動脈を含めた総頸動脈の血流遮断にて Angioguard による通常の CAS が施行できた。しかし、この逆の圧格差が生じた場合や、圧格差がない場合、さらに対側の椎骨動脈が低形成や無形成の場合は embolic protection 方法やステントの留置方法が異なるため、CAS についてはより high risk と考えられる。遺残原始動脈合併症例では対側 VA が hypoplasia や aplasia である場合があり⁶⁾、この場合遺残原始動脈も確実に温存する必要がある。こういう例では、内頸動脈と遺残原始動脈の両方にステントをおく手技が必要であり⁷⁾ それぞれの血管に protection device が必要となる。総頸動脈、外頸動脈の遮断に加え両血管にステント留置をする手技を要するため、手技が煩雑となり周術期合併症が懸念さ

れる。またproximal occlusionにて内頸動脈からPPAへの血流が発生する場合も同様にPPAのembolic protectionを要するが、やはりdouble stentingが望ましいと考えられる。本症例のように対側VAが十分に太い状況で内頸動脈からPPAへの血流が生じる場合でdouble stentingを行わない場合には、外頸動脈と総頸動脈のバルーン付カテーテルによる同時遮断とPPAへの4FrカテーテルとPercusurge guardwireの留置および内頸動脈のAngioguardによる遠位血栓防止、手技後の4Frカテーテルからのdebris吸引とその後のカテーテル回収で対処可能と考えられる。ただし4Frカテーテルの誘導が困難な高度狭窄の場合、Percusurge guardwireをPPAのなるべく分岐部近くに留置し手技終了後ステントを通してdebrisの吸引をすることとなり、十分なdebrisの回収が可能かどうか問題となる。本例のような血流を示し、健側VAが十分太い場合、我々の手技は通常のカSと手技的には大きな違いはなく簡便であり、有用と思われる。ステント留置後、ステントのストラットを通してPPAに血液が灌流することになるが、周術期に投薬される、clopidogrelおよびaspirinにより急性期の血栓形成は少なく、またステント表面が内膜に覆われれば血栓形成は起こりにくい。対側椎骨動脈の血流が悪い場合以外は本法も選択肢の一つと考える。しかし、狭窄部が本例のように内頸動脈とPPA分岐部直前ではなく、通常の症例のように外頸動脈分岐部付近である場合は、バルーン付きガイディングカテーテルによる総頸動脈と外頸動脈の同時遮断は行えないため、Parodi法を用いることが望ましいと考える。

結 論

PPAを合併する頸部頸動脈狭窄症に対し、外頸動脈と総頸動脈をバルーン付ガイディングカテーテルにて同時に遮断し、PPAから内頸動脈への血流を確認した上で通常の手技のごとくAngioguardを内頸動脈に留置しCASを施行した。通常の手技と大きな違いはなく、簡便であり有用な方法と考える。

文 献

- 1) Brown L, Partridge H, Eckstein MR: Bifurcation of the cervical internal carotid artery. Arch Surg 121:367, 1986.
- 2) Grego F, Stramanà R, Lepidi S, et al: Primitive proatlantal intersegmental artery and carotid endarterectomy. J Vasc Surg 39:691, 2004.
- 3) 川堀真人, 黒田敏, 安田宏, 他: 遺残舌下動脈を伴う内頸動脈起始部狭窄病変により頭蓋内多発梗塞をきたした1例. 脳卒中 31:96-99, 2009.
- 4) Kanazawa R, Ishihara S, Okawara M, et al: A successful treatment with carotid arterial stenting for symptomatic internal carotid artery severe stenosis with ipsilateral persistent primitive hypoglossal artery: case report and review of the literature. Minim Invasive Neurosurg 51:298-302, 2008.
- 5) Kurose K, Kishi H, Nishijima Y, et al: Type2 proatlantal artery associated with a ruptured aneurysm: case report. Neurol Med Chir 30:191-193, 1990.
- 6) Lie T: Persistent carotid-basilar and carotid-vertebral anastomosis. Congenital anomalies of the carotid arteries. Amsterdam, Excerpta Medica, 1968, 52-94.
- 7) Matsumoto S, Nakahara I, Higashi T, et al: Successful combination therapy with parallel stent-graft placement and coil embolization for a treatment of a fusiform brachiocephalic artery aneurysm: a case report. JNET 2:56-61, 2008.
- 8) Morales M, Anacleto A, Berbert M, et al: Endovascular treatment for recurrent carotid stenosis in a patient with proatlantal intersegmental artery. J Vasc Interv Radiol 17:399-400, 2006.
- 9) Padget DH: The development of the cranial arteries in the human embryo. Contrib Embryol 32:205-262, 1948.
- 10) Padget DH: Designation of the embryonic intersegmental arteries in reference to the vertebral artery and subclavian stem. Anat Rec 119:349-356, 1954.
- 11) Pinstein ML, Gerald B: Anomalous communication of the external carotid and vertebral arteries. Persistence of the proatlantal artery. Radiology 118:626, 1976.
- 12) 高島靖志, 宇野英一, 若松弘一, 他: Three-dimensional CT angiographyが有効であったPersistent primitive hypoglossal arteryの1例. Jpn J Neurosurg 7:125-128, 1998.
- 13) 田之畑一則: 脳・頭頸部血管のNormal Variations. 東京, メジカルビュー社, 2001, 94-96.

要 旨

【目的】 persistent proatlantal artery (PPA) を合併した頸部頸動脈狭窄症に対し、バルーン付ガイディングカテーテルとAngioguardによるcarotid artery stenting (CAS) を施行した症例を報告する。**【症例】** 77歳男性、主訴は意識障害。MRIで左脳梗塞を認め、MRAでは左頸部頸動脈狭窄および同側遺残原始動脈を認めた。脳血管撮影では内頸動脈に54%の狭窄が認められ、3 D-CTAでPPA, type 1 と診断した。狭窄部は内頸動脈とPPAの分岐部直前であり通常の手技ではPPAの遠位塞栓防止ができないため、バルーンにて外頸動脈分岐部ごと総頸動脈を遮断し、PPAから内頸動脈へのflow reversalを利用し、内頸動脈のAngioguardによるembolic protection下で、合併症なくCASを施行し得た。**【結語】** PPAを合併する頸部頸動脈狭窄症に対する本方法によるCASは、有用な方法と考える。