

【論文種別】

テクニカルノート

【タイトル】

破裂と再発を繰り返す解離性脳底動脈瘤に対して「Coil Sandwich Technique」を用いて根治できた1例

A case of the repeatedly re-ruptured basilar trunk dissecting aneurysm treated by “Coil Sandwich Technique”

【著者】

林直樹¹⁾²⁾、川西正彦¹⁾、新堂敦¹⁾、岡内正信¹⁾、河北賢哉³⁾、苧坂直博²⁾、田宮隆¹⁾

Naoki HAYASHI¹⁾²⁾, Masahiko KAWANISHI¹⁾, Atsushi SHINDO¹⁾, Masanobu OKAUCHI¹⁾, Kenya KAWAKITA³⁾, Naohiro OSAKA²⁾, Takashi TAMIYA¹⁾

【所属】

- 1.香川大学医学部 脳神経外科
- 2.おさか脳神経外科病院 脳神経外科
- 3.香川大学医学部附属病院 救命救急センター

1.Department of Neurological Surgery, Faculty of Medicine,

Kagawa University, Kagawa, Japan

2. Department of Neurosurgery, Osaka Neurosurgical Hospital,
Kagawa, Japan

3. Department of Emergency Medical Center, Kagawa University
Hospital, Kagawa, Japan

【連絡著者】

林 直樹 Naoki HAYASHI

所属：香川大学医学部 脳神経外科

Department of Neurological Surgery, Faculty of Medicine,
Kagawa University

住所：〒761-0793 香川県木田郡三木町池戸 1750-1

電話番号：087-891-2207 Fax：087-891-2208

メール：nhayashi@osaka-nhp.jp

1750-1 Ikedo, Miki-cho, Kita-gun, Kagawa 761-0793, Japan

Tel: +81-87-891-2207 Fax: +81-87-891-2208

E-mail: nhayashi@osaka-nhp.jp

【Key words】

Ruptured dissecting aneurysm of the basilar trunk, Subarachnoid
hemorrhage, Stent-assisted coil embolization, Coil Sandwich
Technique

本論文を、日本脳神経血管内治療学会機関誌「JNET Journal of Neuroendovascular Therapy」に投稿するにあたり、筆頭著者、共著者によって、国内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないことを誓約いたします。

< 和文要旨 >

【目的】治療に難渋した破裂解離性脳底動脈瘤に対し、inflow でコイルを巻き、ステントでサンドイッチ状に挟み固定することで根治できた1例を経験したので報告する。【症例】41歳男性。4年半前に解離性脳底動脈瘤破裂に対しステント併用塞栓術を施行し一旦治癒。しかし新たな解離性脳底動脈瘤が破裂しステント併用塞栓術による再治療を行ったが再増大を繰り返し4度目の治療となった。ステントが3枚重なっており、マイクロカテーテルの瘤内挿入が困難なため、inflow でコイルが巻くようにステントで挟んで固定し動脈瘤の完全閉塞を得た。【結論】ステント併用塞栓術後の再発に対する治療オプションとして、この“Coil Sandwich Technique”が役立つことがあると考える。

< 本文 >

【緒言】

解離性脳底動脈瘤（basilar artery dissecting aneurysm; BA dissecting AN）の破裂によるくも膜下出血（subarachnoid hemorrhage; SAH）は、稀な疾患ではあるが、致死的な再出血を認めることが多く、一般的に転帰不良な疾患である。その治療も非常に困難で挑戦的な疾患である。今回我々は、SAH と動脈瘤の増大を繰り返し、治療に難渋した BA dissecting AN に対して、コイルをステントでサンドイッチ状に挟むこと（“Coil Sandwich Technique”）で動脈瘤への inflow を抑え、根治できた 1 例を経験したので報告する。

【症例呈示】

症例は 41 歳男性。既往歴として 29 歳時に脳梗塞、31 歳時に左眼網膜中心動脈閉塞による視力障害を認める。家族歴に特記すべきことはない。

現病歴は、200x 年 5 月（36 歳時）に BA dissecting AN の破裂による SAH（Hunt & Kosnik Grade III）を発症し、当院で Driver stent (Medtronic, Minneapolis, MN, USA) を併用したコイル塞栓術を施行した。術後新たな神経脱落症状なく経過し、その後の定期的な画像検査にて再発傾向は認められなかった。しかし 200x+4 年 12 月（40 歳時）の MRI, A にて前回治療した瘤とは別に対側の BA trunk に新たな動脈瘤が発生していた (Fig.1)。これに対し再治療予定であったが、200x+5 年 2 月県外で SAH（Hunt & Kosnik Grade I）を発症し、他院にて治療が行われた。動脈瘤は左 BA-AICA（anterior inferior cerebellar artery）分岐部近傍に認められ、コイル塞栓術を施行され、急性期の再破裂は防止で

きたが、再増大を来し、同年3月に同院にて Enterprise VRD (Johnson & Johnson, Raynham, MA, USA) を2枚追加した上で再度コイル塞栓術が行われた (Fig.2)。

神経脱落症状なく退院し、当院にて経過観察の継続となった。同年5月のMRI,Aにて前回他院で治療した左BA-AICA動脈瘤がcoil compactionにより再増大を来していたため同年6月治療することとなった。

【治療】

術前アスピリン100mg/日とクロピドグレル75mg/日の内服を継続。局所麻酔下に、右橈骨動脈に4.5Frロングシース:Parent Plus 45 (メディキット, 宮崎)、右大腿動脈には5Frロングシース:ラジフォーカスイントロデューサーII H (テルモ, 東京) を留置して全身のヘパリン化を行った。4.5Frシースからは4Fr診断用カテーテル: CXカテーテルAII (ガドリウス・メディカル, 東京) を右椎骨動脈へ誘導し、術中のBA確認用とした。右大腿動脈からは、ガイディングカテーテルとして5Fr Launcher (Medtronic, Minneapolis, MN, USA) を左椎骨動脈に誘導した。

まず、本治療では左AICAを閉塞する可能性があり、脳底動脈のAICA分岐部にてSceptor XC 4.5×11mm (MicroVention TERUMO, Tustin, CA, USA) を用いてballoon occlusion test (BOT) を行った。BAのparent artery occlusion (PAO) はtoleranceがないことが判明したが、angiographicalに内頸動脈撮影にてP-com artery (posterior communicating artery) を介して左SCA (superior cerebellar artery) より左AICA末梢への側副血行が確認でき、術中左AICAの閉塞は可能と判断した。

Neurodeo 10 Air(メディコスヒラタ, 大阪)を ASAHI CHIKAI black 14(朝日インテック, 愛知)を用いて、trans-cell approach で瘤内への誘導を試みたが、ワイヤーは瘤内深く誘導可能であるにもかかわらず、マイクロカテーテルはすでに3枚重なっているステントのストラットに引っかかり挿入することができなかった。安定性を上げるため Carnelian HF 2.7F-125cm(東海メディカルプロダクツ, 愛知)と Carnelian MARVEL NonTaper1.9F-155cm(東海メディカルプロダクツ, 愛知)を同軸に用いて瘤内への誘導を試みたが、やはり挿入することはできず、瘤内へのコイルの追加は困難と判断した。

次の手段として更なるステントを重ねることでの整流効果に期待し、Prowler select plus(Johnson & Johnson, Raynham, MA, USA)を posterior cerebral artery(PCA)まで誘導し、Enterprise VRD 4.5×14mm で動脈瘤ネックをカバーするように留置したが、瘤内への血流には変化がみられなかった。

そこで inflow である neck が非常に狭かったので、その neck 部にコイルを置き(すでに留置されているステントの内側に巻く)、そのコイルが動かないように内側に更にもう一枚ステントを置いて挟み込んで固定することで neck を閉塞できる可能性があると考えた。Enterprise VRD 4.5×22mm を BA に誘導して、次に Neurodeo の先端を動脈瘤の neck(inflow) 部分に誘導した。Enterprise を少しずつ展開して neck の just distal まで約半分展開した状態でキープし、その状態で Neurodeo から Target 360 Ultra 2mm×3cm(Stryker, Fremont, CA, USA)を挿入して、ステント jail 腔で neck を覆うような位置となるように微調整をしながらコイルを留置した。ここで造影すると動脈瘤への血流が消失していることが確認で

きたため、Enterprise を完全に展開し、さらにコイルを離脱した。これでコイルを2枚のステントで挟む形で neck 部分にうまく留置することができた (Coil Sandwich Technique : Fig.3, Fig.4)。

最終造影でも左 AICA を含めて動脈瘤は消失していたが、左 AICA 領域への血流は側副血行より造影されており、新たな神経脱落症状なく手技を終了した。

最終治療から6ヶ月後の follow-up でも、金属アーチファクトにより評価は困難であるものの、近傍の血管に明らかな異常は見られず、動脈瘤の閉塞が維持できているものと考えられる (Fig.5)。

【考察】

BA trunk AN は脳動脈瘤全体の 1-2.1% と比較的稀な動脈瘤であり^{1,2)}、SAH の原因の 1% 程度と言われている^{1,3)}。BA trunk dissecting AN の治療は、非常に困難であり挑戦的である。未破裂無症候性の場合まずは慎重に経過観察を行い、もし瘤状拡大や mass effect による脳幹症状悪化、脳幹の虚血症状出現、SAH を起こせば、その時点で外科的治療を考慮すべきであるとする報告が多い⁴⁻⁶⁾。しかし BA dissenting AN は SAH 発症率が高く (40-60%)^{3,6-8)}、mortality も高い疾患 (17-79%) であり^{2,6-10)}、転帰良好例は非常に少ない (25-33%)⁷⁻⁹⁾。さらに SAH 発症例では再出血率 (19-86%) が高く^{2,7,8,10,11)}、再出血した場合の mortality は極めて高い (70-90%) 疾患である¹⁰⁻¹²⁾。また再出血は初回出血後の 24 時間以内に起こることが多いと言われ^{2,5)}、早急な再出血の防止と、高い動脈瘤閉塞率を維持できる治療法を検討しなければならない。

これまで直達手術としては wrapping、proximal occlusion、direct

clipping などが考えられ、転帰良好な症例報告は散見される^{4,5,7)}。しかし手技が困難だけでなく、治療合併症も多く、特に wrapping を行った症例の転帰は不良との報告が多い^{4,5)}。その後血管内治療が広く行われるようになり、BA dissecting AN に対して保存的加療よりも血管内治療の優位性が示されてきた^{6,13)}。Kim BM ら⁶⁾は自験例 21 例の BA dissecting AN の治療に際して、血管内治療群の方が保存的加療群より明らかに転帰良好例が多いこと(90.9%vs50.0%)を示し、同様に Sönmez Ö ら¹³⁾は後方循環の dissecting AN 478 例の meta-analysis において、血管内治療群は長期動脈瘤閉塞率 87%、長期転帰良好例 84%と非常に良好な成績を示しており、BA dissecting AN に対する外科的治療として血管内治療が確立されてきている。

血管内治療の方法としては、BA dissecting AN に対して dominant side の vertebral artery(VA)の PAO を行い BA の flow reduction と flow reversal で治療した症例や^{5,10)}、側副血行の確保できている症例では BA の PAO(internal trapping)による deconstructive な治療の報告が良好な結果を示しており^{8,9,13)}、完全閉塞率が高いことから現在でも症例によっては有効な治療法として行われている。ただ、BA trunk では側副血行の状態により PAO できない症例も多いため、reconstructive な治療が望ましく、1990 年台後半からステント併用コイル塞栓術の報告が増え^{1,3,6,13,14)}、ステントのみやコイルのみで治療するよりステント+コイルで治療する方が治療効果は高いとされ^{3,15)}、良好な治療成績を示している。Jiang C ら³⁾は、BA dissecting AN 自験例 29 例に対して血管内治療を行ったが、modified Rankin Scale(mRS);0-1 の転帰良好例が 85.7%と非常に良好で、ステント+コイルで治療した群は画像上再発を 1 例も認められ

なかったと報告している。

さらに近年では Pipeline Embolization Device(PED) (Medtronic, Irvine, CA, USA)に代表される Flow diverter(FD)による治療困難な頭蓋内動脈瘤の良好な治療報告が増え、未破裂症例ではあるが後方循環における dissecting AN に対する FD による治療報告も見受けられる^{12,16,17)}。Natarajan SK ら¹⁷⁾は 12 例の後方循環における未破裂 fusiform AN に対して PED を用いた reconstructive な治療を行い、全例で動脈瘤の完全閉塞を確認し、mRS;0-1 の転帰良好が 91.7%であったとして PED の有用性を示した。また BA trunk dissecting AN の SAH 発症例についても PED で転帰改善を得た症例報告がある¹⁸⁾。

ステントや FD を用いた reconstructive な治療において注意が必要なこととして、術前後の抗凝固、抗血小板療法の重要性が指摘されている^{12,19,20)}。他科外科的手術予定のため術前抗血小板薬を休薬していた際にステント閉塞を来した報告や¹⁹⁾、破裂症例であったために抗凝固や抗血小板薬の投与が不十分となってしまったことでステント閉塞を来した症例など²⁰⁾、抗血小板薬の必要性が示されており、SAH 発症例でも可能な限り抗血小板薬の投与は必要であると考えられる。

今回我々の経験した症例では、若年でこれまでも脳梗塞や網膜中心動脈閉塞など血管障害をきたしている症例であり、内科的に collagen disease や自己免疫疾患など精査したが、明らかな基礎疾患は発見されていない。

治療の strategy としては neck も狭く saccular な形態を呈していたため、瘤内へのコイルの追加を第一に考え治療を開始したが、本症例ではこれまでの治療ですでに 3 枚のステントが neck 部分に重なって留置され

ているため瘤内にマイクロカテーテルを挿入することができなかった。そこで4枚目のステントを重ねることでの整流効果に期待してステントを重ねたが治癒に至らず、過去の経過から今後早期に再破裂する可能性が非常に高いと考え、コイルをステントで挟んで固定してinflowを抑える方法に考えが至った。幸い本法にて動脈瘤の完全閉塞が得られた。

我々は今回行ったCoil Sandwich TechniqueがBA dissecting ANに対する第一選択の治療とは考えられず、これまでの報告からも初期治療としては、PAOあるいはステント併用コイル塞栓術、さらに今後はFDでの治療などを考慮すべきである。しかしステントやFDを使用して治療したにも関わらず動脈瘤が開存した状態で再増大し再治療が必要になる場合や、ステント留置部分に新たに動脈瘤が出現した場合など、本症例のように瘤内へtrans-cell approachでマイクロカテーテル挿入が困難な症例と必ず遭遇すると思われる。そのような場合この“Coil Sandwich Technique”が有用となる可能性があると考えられる。

【結語】

今回我々は、破裂と増大を繰り返すBA dissecting ANに対する治療に際し、

2枚のステントの間に慎重にコイルを留置して挟み込むことで、inflowからの瘤内への血流を完全に閉塞させることに成功した。ステント併用瘤内塞栓にて治療された再発動脈瘤の治療オプションとして、“Coil Sandwich Technique”は知っておくべき方法のひとつである。

< 利益相反 >

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

< 文献 >

- 1) Chung J, Park H, Lim YC, et al. Endovascular treatment of basilar artery trunk aneurysms. *Acta Neurochir(Wien)* 2011;135:2137-2145
- 2) Saliou G, Sacho RH, Power S, et al. Natural History and Management of Basilar Trunk Artery Aneurysm. *Stroke* 2015;46:948-953
- 3) Jiang C, Li Q, Liu JM, et al. Endovascular Treatment for the Basilar Artery Dissection. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2014;37(3):646-656
- 4) Pozzati E, Andreoli A, Padovani R, et al. Dissecting Aneurysms of the Basilar Artery. *Neurosurgery* 1995;36:254-258
- 5) Ali MJ, Bendok BR, Tella MN, et al. Arterial Reconstruction by Direct Surgical Clipping of a Basilar Artery Dissecting Aneurysm after Failed Vertebral Artery Occlusion: Technical Case Report and Literature Review. *Neurosurgery* 2003;52:1475-1481
- 6) Kim BM, Suh SH, Park SI, et al. Management and Clinical Outcome of Acute Basilar Artery Dissection. *Am J Neuroradiol (AJNR)* 2008;29:1937-41
- 7) Amin-Hanjani S, Ogilvy CS, Buonanno FS, et al. Treatment of

Dissecting Basilar Artery Aneurysm by Flow Reversal. Acta Neurochir(Wien) 1997;139:44-51

8) Yang X, Mu S, Lv M, et al. Endovascular Treatment of Huge Dissecting Aneurysms Involving the Basilar Artery. Experience and lessons from two cases. Interv Neuroradiol 2007;13:369-380

9) Mu SQ, Yang XJ, Li YX, et al. Endovascular Treatment of the Huge Dissecting Aneurysms Involving the Basilar Artery by the Internal Trapping Technique: Technical Note. Chin Med J (Engl) 2015;128:1916-21

10) Nakahara T, Satoh H, Mizoue T, et al. Dissecting aneurysm of basilar artery presenting with recurrent subarachnoid hemorrhage. Neurosurg Rev 1999;22:155-158

11) Higashida RT, Smith W, Gress D, et al. Intravascular stent and endovascular coil placement for a ruptured fusiform aneurysm of the basilar artery. J Neurosurg 1997;87:944-949

12) Chan RS, Mak CH, Wong AK, et al. Use of the Pipeline Embolization Device to Treat Recently Ruptured Dissecting Cerebral Aneurysms. Interv Neuroradiol 2014;20:436-441

13) Sönmez Ö, Brinjikji W, Murad MH, et al. Deconstructive and Reconstructive Technique in Treatment of Vertebrobasilar Dissecting Aneurysm: A Systematic Review and Meta-Analysis. Am J Neuroradiol (AJNR) 2015;36:1293-98

14) van Oel LI, van Rooij WJ, Sluzewski M, et al. Reconstructive Endovascular Treatment of Fusiform and Dissecting Basilar Trunk

Aneurysms with Flow Diverters, Stents, and Coils. Am J Neuroradiol (AJNR) 2013;34:589-95

15) Li C, Li Y, Jiang C, et al. Stent alone treatment for dissections and dissecting aneurysms involving the basilar artery. J Neurointerv Surg 2015;7:50-55

16) Albuquerque FC, Park MS, Abla AA, et al. A reappraisal of the Pipeline embolization device for the treatment of posterior circulation aneurysms. J Neurointerv Surg 2015;7:641-645

17) Natarajan SK, Lin N, Sonig A, et al. The safety of Pipeline flow diversion in fusiform vertebrobasilar aneurysms: a consecutive case series with longer-term follow-up from a single US center. J Neurosurg Published online 2015;Dec 11:1-9

18) Gong D, Yan B, Dowling R, et al. Successful Treatment of Growing Basilar Artery Dissecting Aneurysm by Pipeline Flow Diversion Embolization Device. J Stroke Cerebrovasc Dis 2014;23(6):1713-1716

19) Koizumi S, Shojima M, Iijima A, et al. Stent-assisted Coiling for ruptured Basilar Artery Dissecting Aneurysms: An Initial Experience of Four Cases. Neurol Med Chir(Tokyo) 2016;56:43-48

20) Kaku Y, Yoshimura S, Yamakawa H, et al. Failure of stent-assisted endovascular treatment for ruptured dissecting aneurysms of the basilar artery. Neuroradiology 2003;45:22-26

< 図の説明 >

【Figure 1】

A: VAG at initial presentation demonstrated a blister-like aneurysm and the other aneurysm on the right side of the middle portion of the basilar artery.

B: Postoperative VAG demonstrated complete occlusion of two aneurysms.

C: Follow-up VAG after 1.5 years from the first treatment exhibited two aneurysms keeping complete occlusion.

D: MRA after 4.5 years from the first treatment revealed a *de novo* aneurysm located on the left side of the trunk of the basilar artery.

VAG: vertebral angiogram

【Figure 2】

A: Preoperative VAG of the second treatment indicated a *de novo* aneurysm on the just proximal portion of the origin of the left AICA.

B: Postoperative VAG of the second treatment demonstrated complete occlusion of the *de novo* aneurysm.

C: Preoperative VAG of the third treatment revealed recanalization of the aneurysm.

D: Postoperative VAG of the third treatment showed slight dome filling.

VAG: vertebral angiogram, AICA: anterior inferior cerebellar artery

【Figure 3】

A: Preoperative VAG of the fourth treatment revealed recanalization and regrowth of the aneurysm on the left side due to the coil compaction.

B: “Coil Sandwich Technique” was employed for the lesion.

C: VAG during the coil sandwich technique illustrated complete occlusion of the aneurysm was achieved.

VAG: vertebral angiogram

【Figure 4】

The schema of Coil Sandwich Technique

A: At the first step, the tip of microcatheter was positioned in front of the inflow of aneurysm.

B: The second step, an additional stent opened up to half at the just distal portion of the inflow of aneurysm.

C: The third step, a coil placed in front of the inflow of aneurysm.

D: The final step, the stent deployed completely. The coil detached once the aneurysm became not visualized by the contrast. Thus, the inflow of

the aneurysm was sealed by the coil inserted between the two layers of stents.

【Figure 5】

A: Postoperative VAG at the final treatment demonstrated complete occlusion of all aneurysms.

B,C: Follow-up VAG(B) and MRA(C) after 6 months from the final treatment exhibited all aneurysms maintained complete occlusion.

VAG: vertebral angiogram

Fig.1

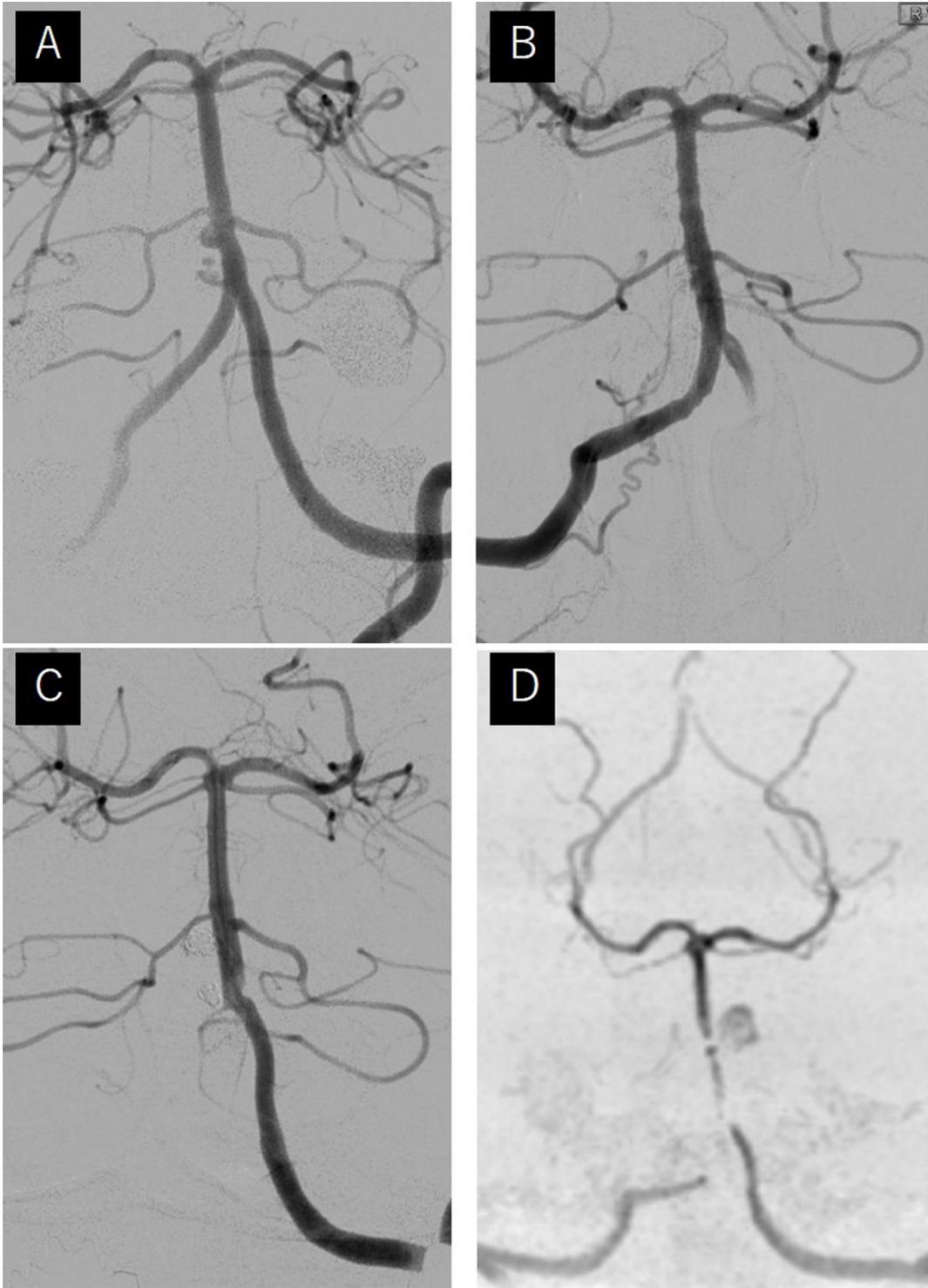


Fig.2

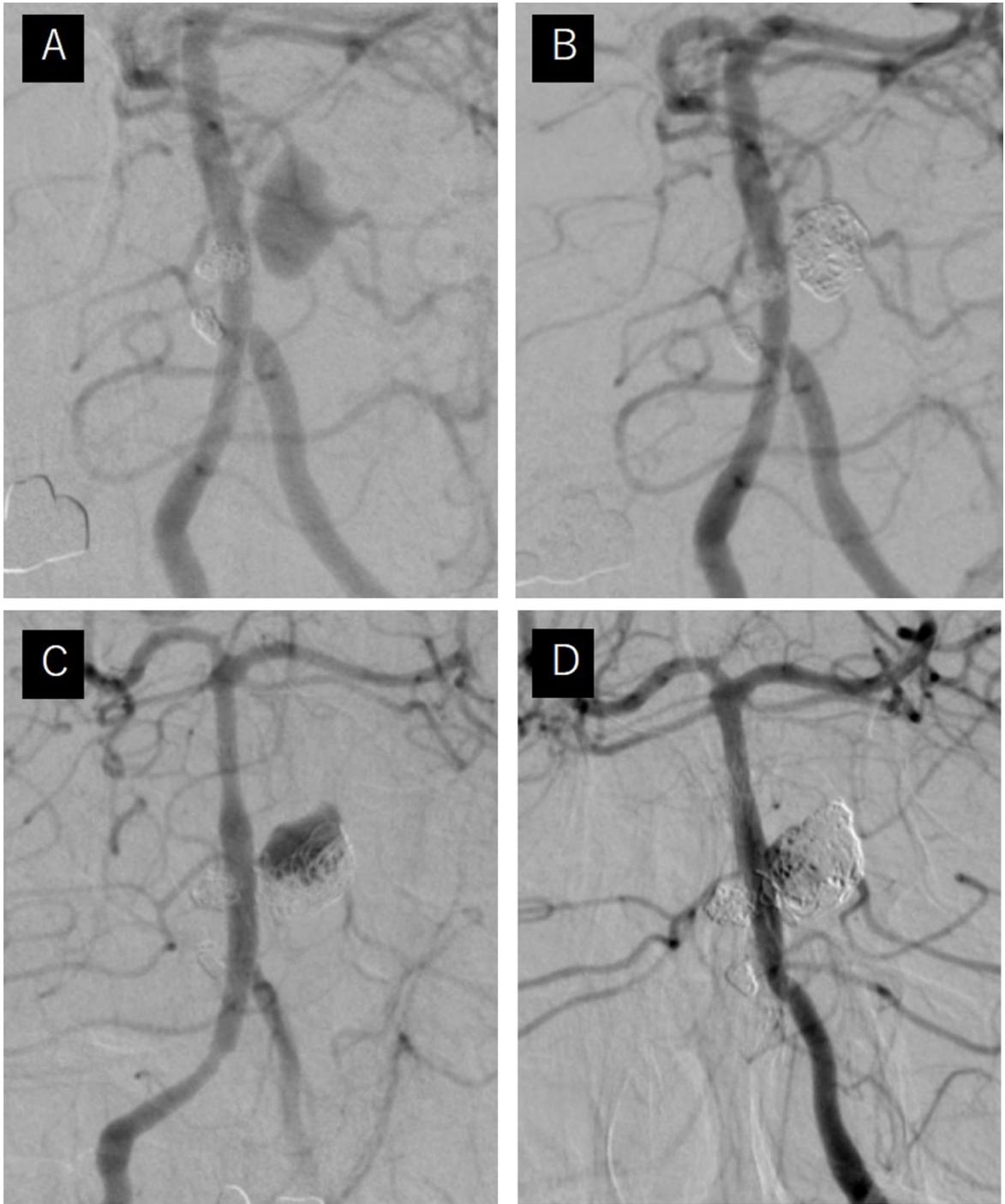


Fig.3

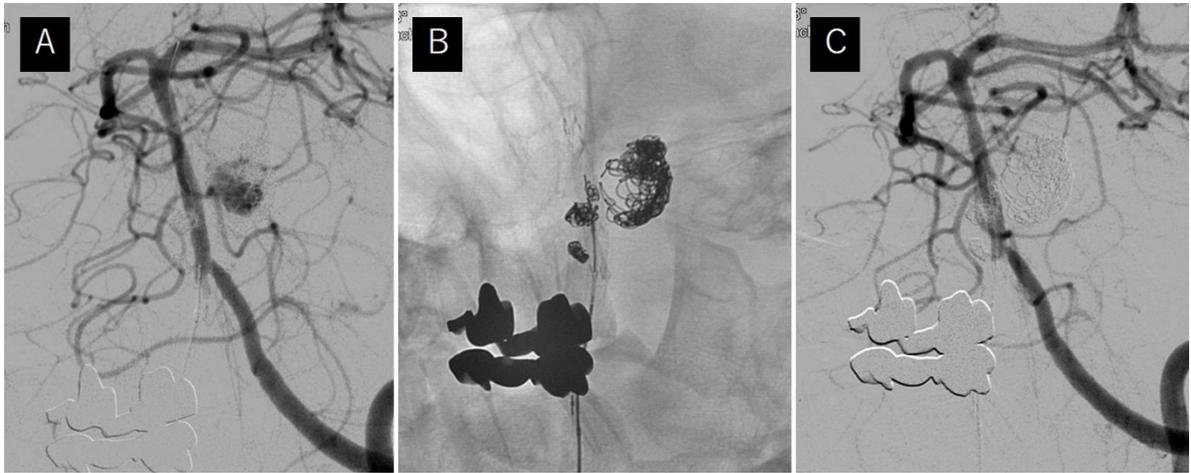


Fig.4

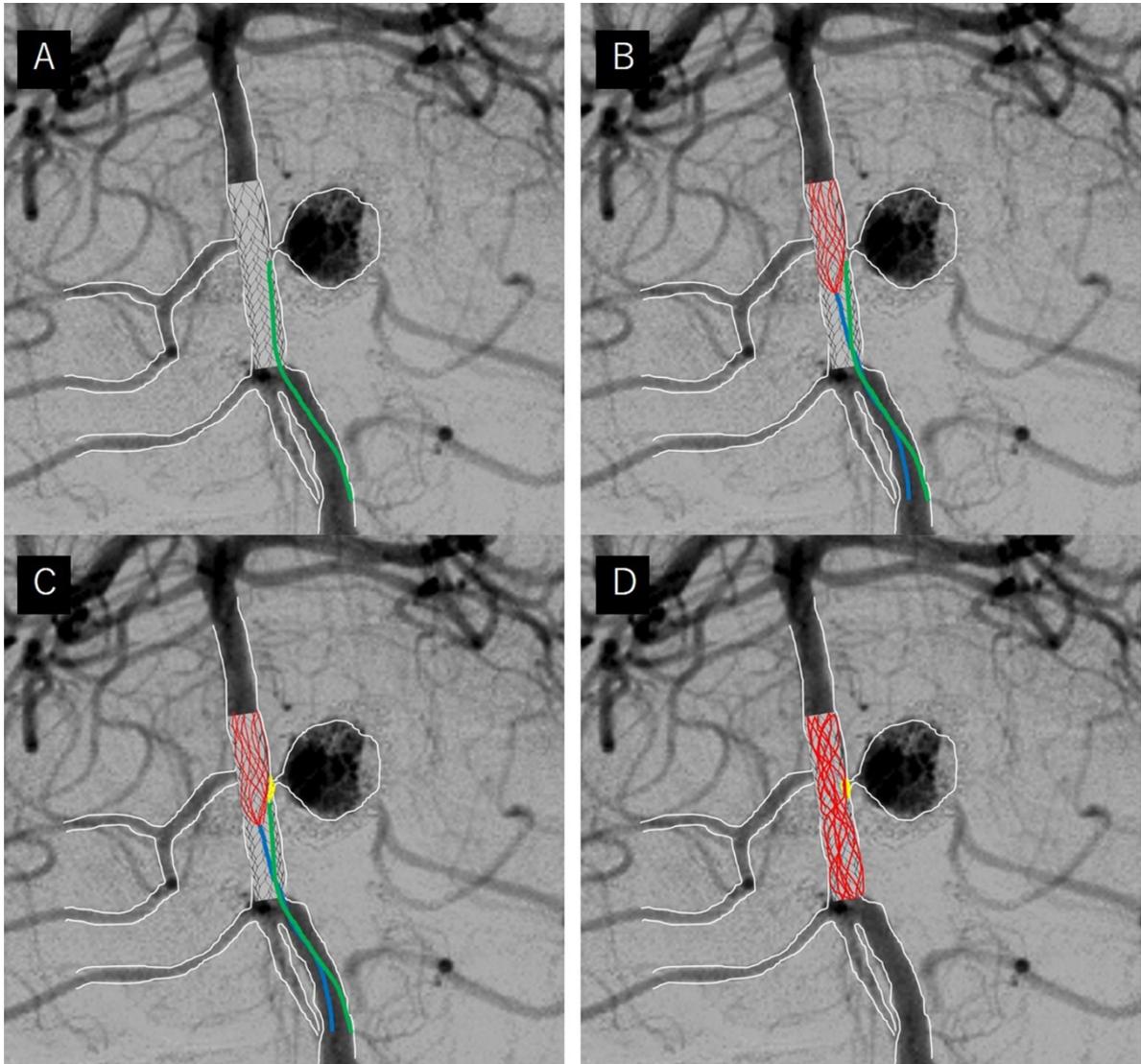


Fig.5

