

1) 症例報告

2) ステンント留置後に再破裂をきたしオーバーラップステントで治療した破裂前下小脳動脈
近位部動脈瘤の 1 例

3) 桑山一行 中田章弘 古野優一 久岡聡史 松本圭吾

4) JCHO 神戸中央病院 脳神経外科

5) 連絡先: 桑山一行 JCHO 神戸中央病院 脳神経外科 〒651-1145 神戸市北区惣山町

2 丁目 1 番 1 号 TEL. 078-594-2211 E-mail: kny1616@yahoo.co.jp

6) anterior inferior cerebellar artery, subarachnoid hemorrhage, stenting, LVIS Jr.

7) 本論文を、日本脳神経血管内治療学会 機関誌 JNET 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し投稿されていないことを誓約致します。

要旨

【目的】破裂前下小脳動脈近位部動脈瘤に対するステント留置後に再破裂を生じオーバーラップステントで治療した症例を報告する。

【症例】53歳の女性。出血源不明のくも膜下出血で経過観察中に再出血を生じた。脳血管撮影で右前下小脳動脈の anterior pontine segment に直径 0.9mm の動脈瘤を認めた。動脈瘤を含む右前下小脳動脈に LVIS Jr. 2x13mm を1本留置したが再々出血を生じ、LVIS Jr. 2x13mm を重ねて留置した。発症後53日で神経脱落症状なく自宅退院した。【結論】コイル塞栓や母血管閉塞が行えない末梢脳動脈瘤は治療に難渋するが、オーバーラップステントは治療オプションとなる可能性がある。

緒言

前下小脳動脈 (anterior inferior cerebellar artery: AICA) の末梢に発生する動脈瘤は、全脳動脈瘤の約 0.1% と稀である¹⁾。この部位の動脈瘤に対して血管内治療を行った報告は散見されるが、ステント留置のみで治療を行った報告はない。今回我々は、くも膜下出血で発症した anterior pontine segment の AICA 動脈瘤に対し、LVIS Jr. を1本留置後再破裂を生じたが、オーバーラップステントで以降の破裂を免れた症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症例呈示

症例：53歳 女性

家族歴：特記事項なし

既往歴：特記事項なし

現病歴：入浴中に聴覚障害を自覚後、右後頭部痛を生じ、当院を救急受診した。

初診時神経学的所見：Japan Coma Scale 0, Glasgow Coma Scale 15で軽度の頭痛を訴えるが、明らかな神経脱落症状を認めなかった。

神経放射線学的所見：頭部CTでは、右延髄前槽から右迂回槽と右シルビウス裂にFisher分類3のくも膜下出血を認めた(Figure 1A,B)。頭部MRIと緊急DSAを行ったが、明らかな出血源を認めなかった。MRAで左椎骨動脈は頸部より描出されなかった(Figure 1C)。

以上より、Hunt and Kosnik grade I, World Federation of Neurosurgical Societies grade Iの出血源不明のくも膜下出血と診断し、安静と収縮期血圧130mmHg未満の血圧管理を行った。発症後6日に脳血管撮影を再検したが、出血源は不明であった。発症後10日、急激に頭痛が増強し、頭部CTで右延髄前槽を中心とした少量のくも膜下出血を新たに生じていた(Figure 2A)。再度DSAを施行し、右AICAのanterior pontine segmentの血管非分岐部に動脈瘤を認めた。右後下小脳動脈(posterior inferior cerebellar artery: PICA)は欠失しており、右AICAが右PICA領域も還流していた(Figure 2B-D)。動脈瘤の直径は0.9mmで動脈瘤近位部のAICA径は1.4mmであった。

以上より、AICA anterior pontine segment 脳動脈瘤破裂によるくも膜下出血と診断した。手術に際し、術中破裂し止血困難となれば母血管閉塞を行うこと、脳梗塞と脳腫脹が強ければ減圧開頭が必要になる可能性について十分に説明し同意を得たうえで手術に臨んだ。

第 1 回手術所見：搬入 30 分前にアスピリン 300mg とクロピドグレル 300mg を内服した。全身麻酔下に右上腕動脈に 5Fr FUBUKI Dilator Kit(ASAHI INTECC, AICHI, JAPAN)を挿入し、右椎骨動脈第 5 頸椎レベルに、3.4Fr Tactics(TECHNOCRAT, AICHI, JAPAN)を V4 に留置した。Headway17(MicroVention/Terumo, Aliso Viejo, CA, USA)を脳底動脈から右 AICA に進めるために抵抗をかけながら、lesion cross したマイクロガイドワイヤーを引くと、Headway17 が右 AICA に jumping し血圧が急上昇した。降圧を行い、迅速に LVIS Jr. 2.5x13mm(MicroVention/Terumo, Aliso Viejo, CA, USA)を動脈瘤が中心となるように留置した。留置直後の撮影で動脈瘤より出血を認めていた(Figure3A)が、ヘパリンの中和は行わなかった。数分待機後に撮影すると動脈瘤からの出血は止まっており、動脈瘤は術前より小さく見えにくくなっていたため(Figure3B)、手技を終了した。

第 1 回術後経過：術後はベッド上安静と収縮期血圧 130mmHg 未満の血圧管理を継続した。術翌日より、アスピリン 100mg/日とクロピドグレル 75mg/日の内服を行った。発症後 33 日、DSA を施行した。動脈瘤は術前より小さいが描出された(Figure3C)。発症後 36 日、シャワー浴を行った際に頭痛が増強し、頭部 CT で右延髄前槽に再々出血を生じていた(Figure4A)。

第 2 回手術所見：第 1 回手術と同じアプローチ、デバイスで同部位に LVIS Jr.2.5x13mm を重ねて留置した。留置直後より動脈瘤は描出されなくなった(Figure4B)。ステント留置部近位の AICA は攣縮したが 5 分待って撮影すると改善していた。

第 2 回術後経過：術後は安静度を段階的に拡大した。発症後 49 日、DSA を施行し動脈瘤は描出されなかった (Figure 4C)。発症後 53 日、神経脱落症状なく、自宅へ退院した。退院後、アスピリン 100mg/日とクロピドグレル 75mg/日の内服を継続した。第 1 回手術より 1 年でクロピドグレル内服を中止した。発症後 20 か月時点で、明らかな有害事象はなく、日常生活は自立し職場にも復帰している (mRS0)。頭部 MRI で新たな異常は認めず、MRA でステント留置部より末梢の AICA 描出は良好である (Figure 4D)。

考察

AICA の末梢部に動脈瘤が発生する頻度は、0.03～0.5%と非常に稀であり、その 80%がくも膜下出血で発症している^{2),3)}。その発生部位について、魏らは発生部位を解剖学的に 6 つの segment に分類しているが、動脈瘤の発生頻度は、meatal loop 近傍 (72%) が最も多いとされている⁴⁾。本症例の動脈瘤は、AICA 起始部から lateral branch と medial branch に分岐する直前までの anterior pontine segment に位置し、同部位の動脈瘤は渉猟しえた限り、自験例を含め 10 例が報告されている^{5),6)}。これら 10 例は全例女性で、年齢は 15-85 歳 (平均 59.6 歳)、8 例 (80%) がくも膜下出血発症であった。全例、分岐部以外の屈曲部に動脈瘤が発生していた。AICA を含めた後頭蓋窩屈曲部に発生する要因として、胎生期の網状構造より徐々に 1 本の血管が形成されていくが、その段階で分枝が消失した部位が屈曲部であり、同部は先天的に血管壁が脆弱であると指摘されている⁷⁾。同側の PICA は欠損 (8 例) または低形成 (2 例) であり^{5),6)}、これに伴う AICA への血行力学的ストレスが動脈瘤の発生や

破裂に関与している可能性がある。AICA anterior pontine segment 動脈瘤 10 例中、5 例で解離性動脈瘤と診断されている^{5),6)}。本症例は脳血管内治療を行っているため肉眼および病理所見が不明であり、神経放射線画像からも解離性動脈瘤と診断することはできないが、非分岐部に発生しており、解離性動脈瘤であることが疑われる。AICA anterior pontine segment 動脈瘤の治療は 10 例中 7 例に血管内治療が施行されていた。このうち、2 例では母血管閉塞が、4 例ではコイル塞栓術が施行されていた^{5),6)}。母血管閉塞で広範囲脳梗塞が危惧される場合には、occipital artery-AICA anastomosis を施行後に trapping を行うことも治療選択肢となるが、AICA 近位部は外科的アプローチが比較的困難であり、バイパス術も深部であり急性期は特に困難である。本症例では右 PICA が欠損しており、右 AICA の灌流範囲が広がった。このため、右 AICA の母血管閉塞により広範な脳梗塞を生じる可能性が高いと考えた。また動脈瘤は半円状でかつ長径 0.9mm と極めて小さいためコイル塞栓は不可能であると判断し、ステント留置のみで治療した。AICA 末梢部の動脈瘤に対して、ステント留置のみで治療を行った症例は渉猟しうる限り報告がない。

母血管閉塞とコイル塞栓がともに行えない動脈瘤に対しては、フローダイバーター効果を期待してフローダイバーターステント留置が検討される⁸⁾が、本邦での適応は「内頸動脈の錐体部から上下垂体部における大型または巨大かつワイドネック型の頭蓋内動脈瘤」であり、かつ破裂急性期には使用できないため、適応症例は限られる。動脈瘤の母血管に 2 枚以上のステントを留置しフローダイバー

ター効果を期待する治療は、主に椎骨動脈解離性動脈瘤や内頸動脈血豆状動脈瘤に行われている。Chung ら⁹⁾は椎骨動脈解離性動脈瘤に対して3枚のステントを留置した9症例を報告し88.9%のcomplete regressionが得られた。そのなかで、椎骨動脈解離性動脈瘤に2枚のステントを留置した44例と3枚のステントを留置した11例の合計55例をレビューし、61.8%のcomplete regressionが得られたと報告している。Fang ら¹⁰⁾は内頸動脈血豆状動脈瘤に対し2枚のステントを9例、3枚を5例、4枚を1例に留置し、3または4枚のステントを留置した6例では動脈瘤の完全閉塞が得られたが、2枚のステントを留置した9例中3例(33%)に再発を認めた。これらの報告からは、より多くのステントを留置することで金属被覆率が増加し、より高い動脈瘤閉塞率につながると推定できる。

フローダイバーターステントの金属被覆率は30-35%であるのに対し、脳動脈瘤コイル塞栓術の支援に用いられるステントの金属被覆率はLVIS23%、Enterprise8%と低い。LVISはEnterpriseと比較して金属被覆率が高く、LVISを2枚重ねて留置すると、動脈瘤内の壁せん断応力と流速がそれぞれ63.9%、46.1%低下し、1枚のフローダイバーターステント(PIPELINE)留置による51.1%、37.9%低下と比較し、より強いフローダイバーター効果を持つことが示されている¹¹⁾。Zhang ら¹²⁾は破裂内頸動脈血豆状動脈瘤に対し、12例にLVISを2枚留置、1例に3枚留置し、4例(30.8%)に再発所見を認めたが、2例で抗血小板剤中止により自然閉塞し、2例でLVISを追加留置し1例で閉塞が得られ、最終的な閉塞率は92.3%(12/13)と良好な成績を報告している。Yan ら¹³⁾は、10例、15動脈瘤(ICA5, VA5, BA2, MCA1,

PcoA1, AchoA1) に対し LVIS2 枚でオーバーラップステントを行っている。13 動脈瘤はコイル塞栓を併用し、2 動脈瘤はステント留置のみで治療している。3-8 か月後に行った脳血管撮影で 86.7%(13/15)で完全閉塞がえられ、母血管は全例開存していたと報告している。Santillan ら¹⁴⁾は母血管が 0.9mm から 2.5mm (平均 2.2mm) 径の脳動脈瘤に対して LVIS Jr.を用いたコイル塞栓術を施行した 35 症例を報告している。4 例 (11.4%) に周術期のステント内血栓を生じている。4 例中 3 例が Y ステント症例であり、金属量の増加は血栓性合併症の可能性を高めると考察している。本症例では直径 1.4mm の AICA に LVIS Jr.2 枚でオーバーラップステントを行った。ステント留置部位の AICA 径は均一で、カーブは緩やかであったため、ステントの血管壁への密着は比較的良好であったことが血栓性合併症を生じなかった原因の一つと考えられる。

当施設では、出血源不明のくも膜下出血に対して症状安静とし、収縮期血圧を 130mmHg 未満に管理している。発症 7 日、14 日を目安に脳血管撮影を行ない、14 日目の検査でも出血源不明の場合には徐々に安静を解除していく方針としている。本症例は発症 10 日に再破裂を生じ、脳血管撮影で右 AICA 近位部動脈瘤が判明した。右椎骨動脈撮影で V2 遠位から V3 の屈曲蛇行が強く、脳底動脈と右 AICA の角度は鋭角であった。第 1 回手術に際し、病変部周辺でのマイクロカテーテル操作は困難であることが予想されたため 3.4Fr Tactics を中間カテーテルとして使用し操作性は良好であった。Synchrosoft2 を lesion cross し、Headway17 を追従しようとしたが、AICA の起始部に引っかかり、Headway17 を押し抵抗を加えなが

らワイヤーを引くと Headway17 が AICA 内に jumping し、その際に動脈瘤が破裂した。AICA が急激に直線化し動脈瘤にゆがみが生じたことが破裂の原因となったと推察した。ステントはより高い金属被覆率が得られ、LVIS よりも細い血管に適応する LVIS Jr. を選択した。LVIS Jr. 2.5x13mm を 1 本留置し数分待機後の撮影で extravasation は認めず、動脈瘤は小さく不明瞭となっていた。出血量が少なく短時間で止血したため母血管閉塞は行わなかった。その場でオーバーラップステントとすることも考えたが、lesion cross の過程で破裂を生じており、脳底動脈まで引いた Headway17 を再度 Rt. AICA に進める際に再破裂を生じ事態をさらに悪化させるリスクや血栓性合併症のリスクを考え行わず、手技を終了し経過観察を行った。術後 20 日の DSA で動脈瘤は術前と比較し小さく輪郭が不明瞭であり、徐々に安静度を拡大したが、再々出血が認められた。第 2 回手術でも術中破裂を生じ止血困難となる場合には母血管閉塞を行う方針であったが、術中破裂なく 1 回目のステント留置手術と同様の手技で LVIS Jr. 2.5x13mm を同じ部位に重ねて留置しえた。本症例では、留置血管となる AICA の径が 1.4mm と非常に細く、まず LVIS Jr. を 1 本のみ留置したが、十分なフローダイバーター効果を期待するためには 2 本以上のステント留置が必要であり、症例ごとに血栓性合併症と止血予防を trade-off し検討する必要がある。本症例では、第 1 回手術で動脈瘤破裂を、第 2 回手術で右 AICA の攣縮を生じている。椎骨動脈 V3 部の屈曲が強いこと、脳底動脈と右 AICA の分岐角度が急峻であること、AICA の血管系が細いことにより、AICA へのマイクロカテーテル誘導や AICA 末梢病変の血管内手技

は困難である。中間カテーテルで操作性を向上させること、使用デバイスを十分検討し、精細な操作を行うことで AICA の血管壁にできるだけ圧力をかけないことが重要であると考えられる。

本症例のように、動脈瘤自体のコイル塞栓術が困難で、母血管閉塞により重大な合併症が予測され、直達手術も困難な頭蓋内動脈瘤に対して、ステント留置のみで止血効果が期待できる可能性があり、治療選択肢の 1 つになりうると考え報告した。

結語

くも膜下出血で発症した AICA anterior pontine segment 脳動脈瘤に対し LVIS Jr. ステント 1 枚では再破裂を生じたがオーバーラップステントとすることで止血効果が得られた。コイル塞栓術、母血管閉塞、直達手術のいずれもが困難な脳動脈瘤において本治療法は有力な治療選択肢の 1 つとなりうる。

利益相反の開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

文献

- 1) Suzuki K, Meguro K, Wada M, et al.: Embolization of a ruptured aneurysm of the distal anterior inferior cerebellar artery: case report and review of the literature. Surg Neurol 1999; 51: 509-512.
- 2) Ikeda N, Tamura Y, Aoki A, et al.: Ruptured Aneurysm of the Anterior Inferior Cerebellar Artery-Internal Auditory Artery Junction: A Case Report. Jpn Neurosurg 2003; 12: 31-36.

- 3) Saito R, Tominaga T, Ezura M, et al.: Distal anterior inferior cerebellar artery aneurysms: report of three cases and literature review. No Shinkei Geka. 2001; 29: 709-14.
- 4) Gi H, Inoha S, Uno J, et al.: Four cases of direct surgery for anterior inferior cerebellar artery aneurysms. No Shinkei Geka. 2007; 35: 571-8.
- 5) Adachi H, Sakai N, Chihara H, et al.: Endovascular treatment of proximal anterior inferior cerebellar artery ruptured aneurysm: a case report. JNET 2014; 8: 32-39.
- 6) Hashimoto K, Kanemaru K, Yoshioka H, et al.: Intra-aneurysmal Coil Embolization of a Ruptured Proximal Anterior Inferior Cerebellar Artery Aneurysm - A Case Report - NKC 2018; 3: 35-41.
- 7) Fujiwara K, Ito J, Kanayama S.: Multiple aneurysms of the PICA communicating artery: a case report. No Shinkei Geka. 1999; 27: 177-82.
- 8) Brinjikji W, Murad MH, Lanzino G, et al.: Endovascular treatment of intracranial aneurysms with flow diverters: a meta-analysis. Stroke. 2013; 44: 442-7.
- 9) Chung Y, Lee SH, Choi SK, et al.: Triple Stent Therapy for the treatment of Vertebral Dissecting Aneurysms: Efficacy and Safety. World Neurosurg. 2017; 99: 79-88.

- 10) Fang YB, Li Q, Wu YN, et al.: Overlapping stents for blood blister-like aneurysms of the internal carotid artery. Clin Neurol Neurosurg. 2014; 123: 34-39.
- 11) Wang C, Tian Z, Liu J, et al.: Flow diverter effect of LVIS stent on cerebral aneurysm hemodynamics: a comparison with Enterprise stents and the Pipeline device. J Transl Med. 2016; 14: 199.
- 12) Zhang X, Shen R, Zhao J, et al.: Using overlapping low-profile visualized intraluminal support stent-assisted coil embolization for treating blood blister-like aneurysms of the internal carotid artery. Neurosurg Rev. 2020 Apr 2.
- 13) Yan Z, Zheng K, Xiong Y, et al.: Intracranial Complex Ruptured Aneurysms Coiled with Overlapping Low-Profile Visualized Intraluminal Support Stents: Another Available Option for Complex Ruptured Intracranial Aneurysms. World Neurosurg. 2019; 125: e22-e28.
- 14) Santillan A, Boddu S, Schwarz J, et al.: LVIS Jr. stent for treatment of intracranial aneurysms with parent vessel diameter of 2.5mm or less. Interv Neuroradiol. 2018; 24: 246-253

図表の説明

Figure1

A,B: CT on admission shows subarachnoid hemorrhage in the

right premedullary cistern, ambient cistern and sylvian fissure.

C: MRA on admission shows no evident source of bleeding.

Figure2

CT(A) and right vertebral angiography(B-D) just after rebleeding

A: CT shows new subarachnoid hemorrhage in the right premedullary cistern.

B and C: Anteroposterior and lateral view shows absence of the right PICA.

D: Oblique view shows a saccular aneurysm (arrow) in the anterior pontine segment of the right AICA.

Figure3

Oblique view of the right vertebral angiography

A: Just after the stent placement, the aneurysm is bleeding.

B: A few minutes after the stent placement, the aneurysm stops bleeding.

C: Twenty days after the stent placement, the aneurysm is smaller than before surgery.

Figure4

A: Thirty six days after onset, CT shows new subarachnoid hemorrhage in the right premedullary cistern again.

Oblique view of the right vertebral angiography

B: Just after the overlapping stent, the aneurysm has disappeared.

C: Ten days after the overlapping stent, the aneurysm has not recurred.

D: 20 month after onset , MRA shows the right AICA is patent.



Figure1A

142x146mm (150 x 150 DPI)

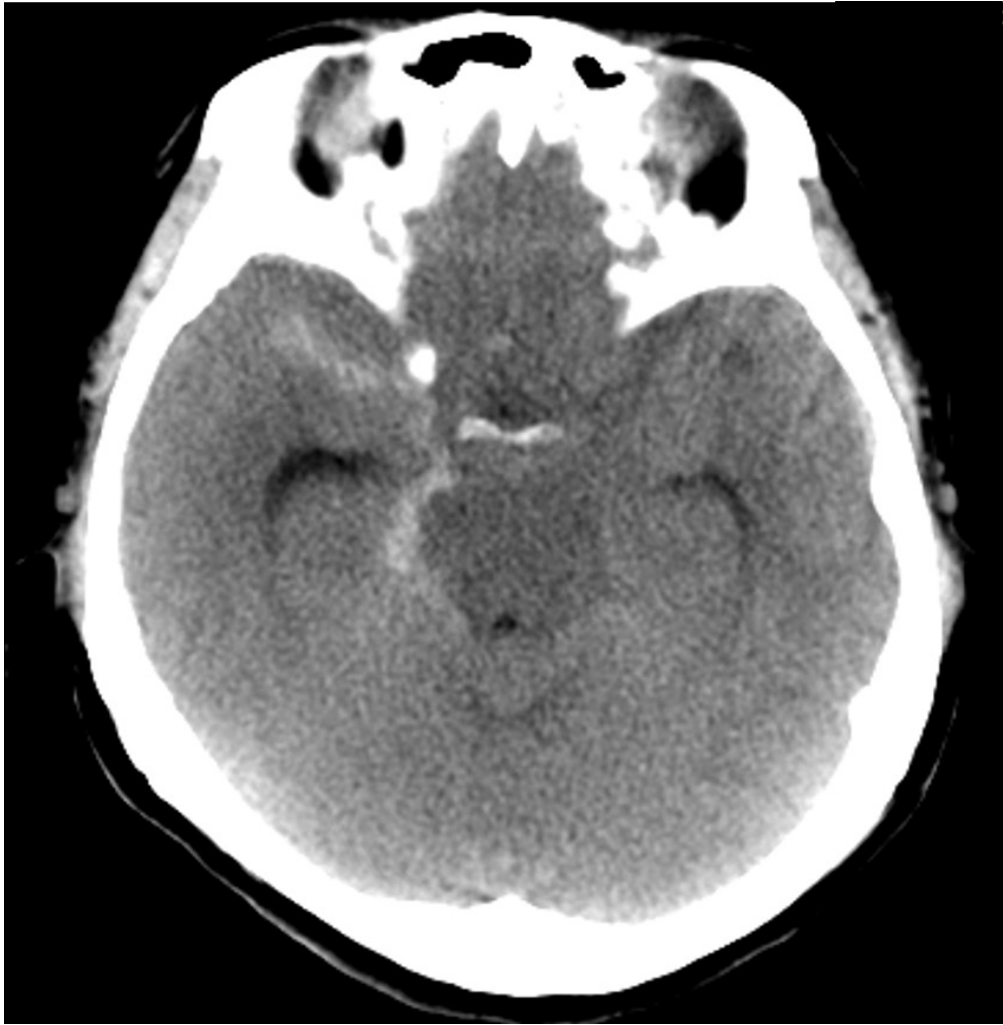


Figure1B

143x146mm (150 x 150 DPI)

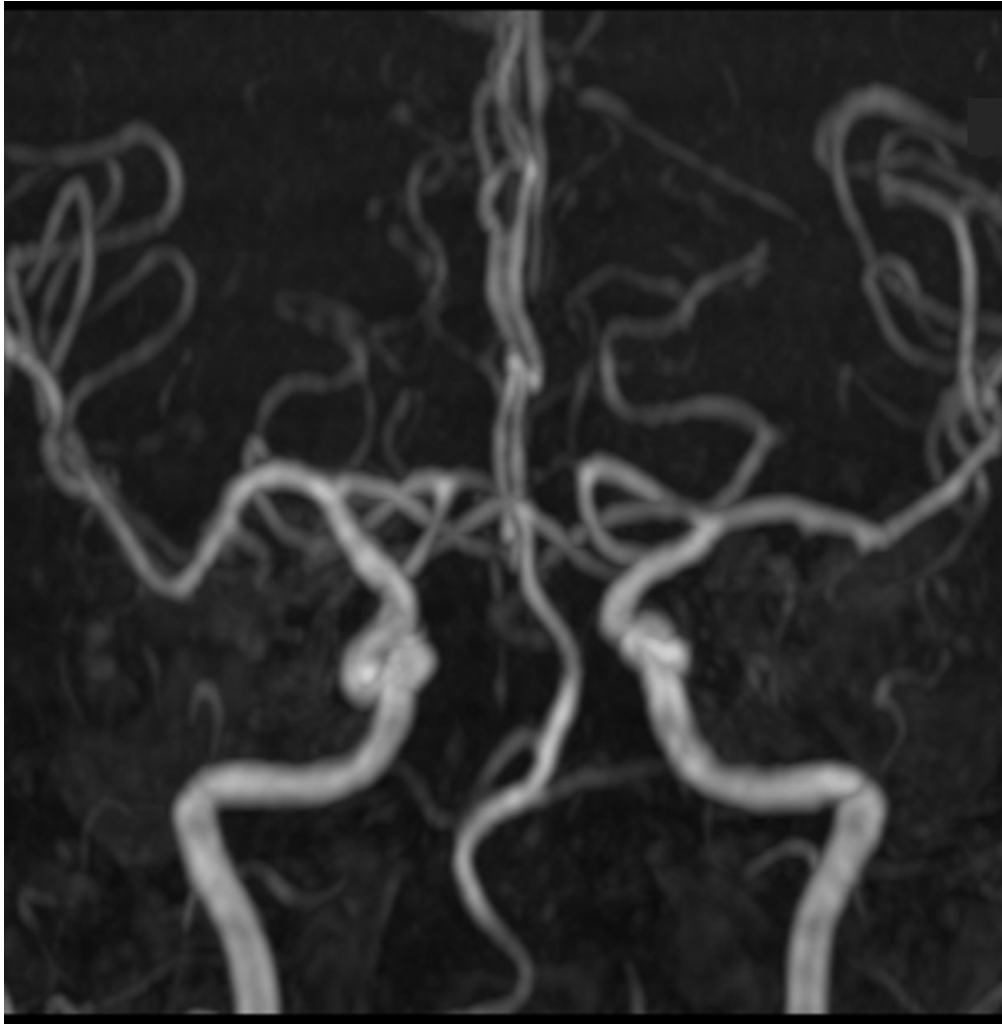


Figure1C

143x146mm (150 x 150 DPI)

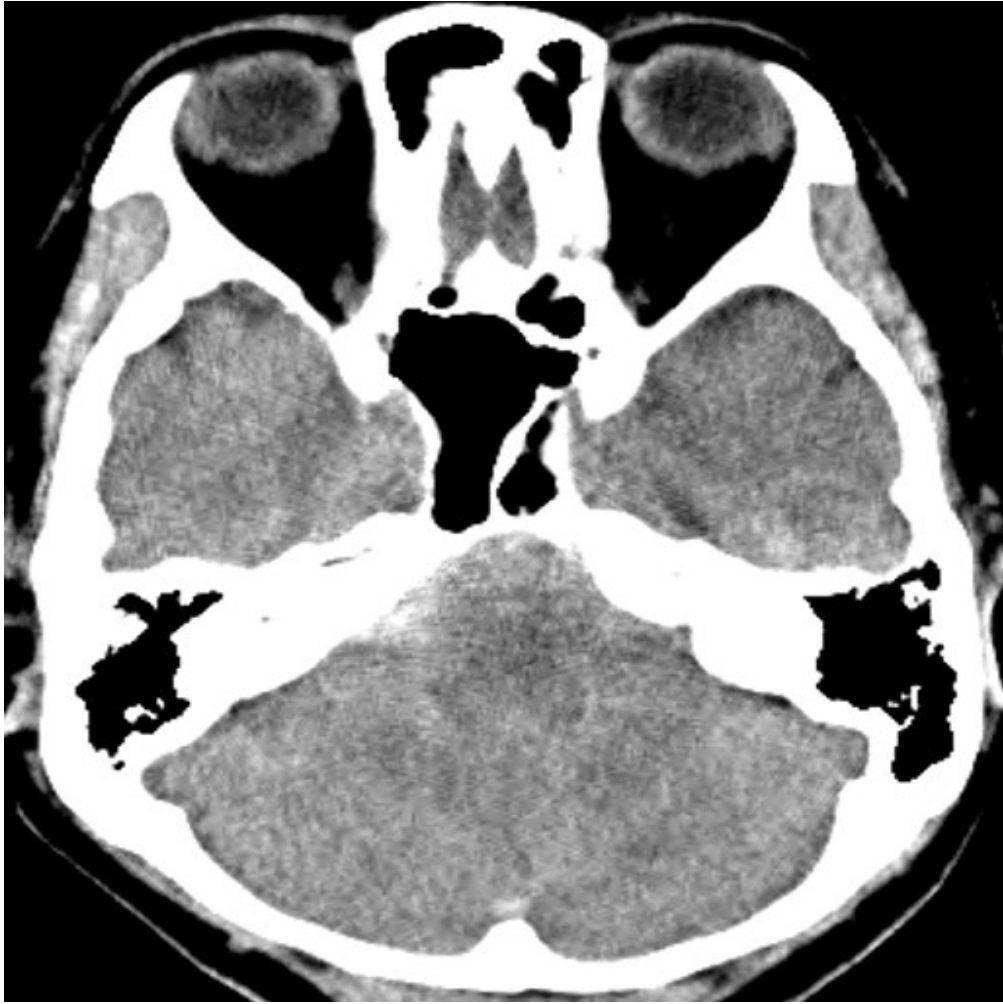


Figure2A

131x143mm (99 x 91 DPI)



Figure2B

131x143mm (150 x 150 DPI)

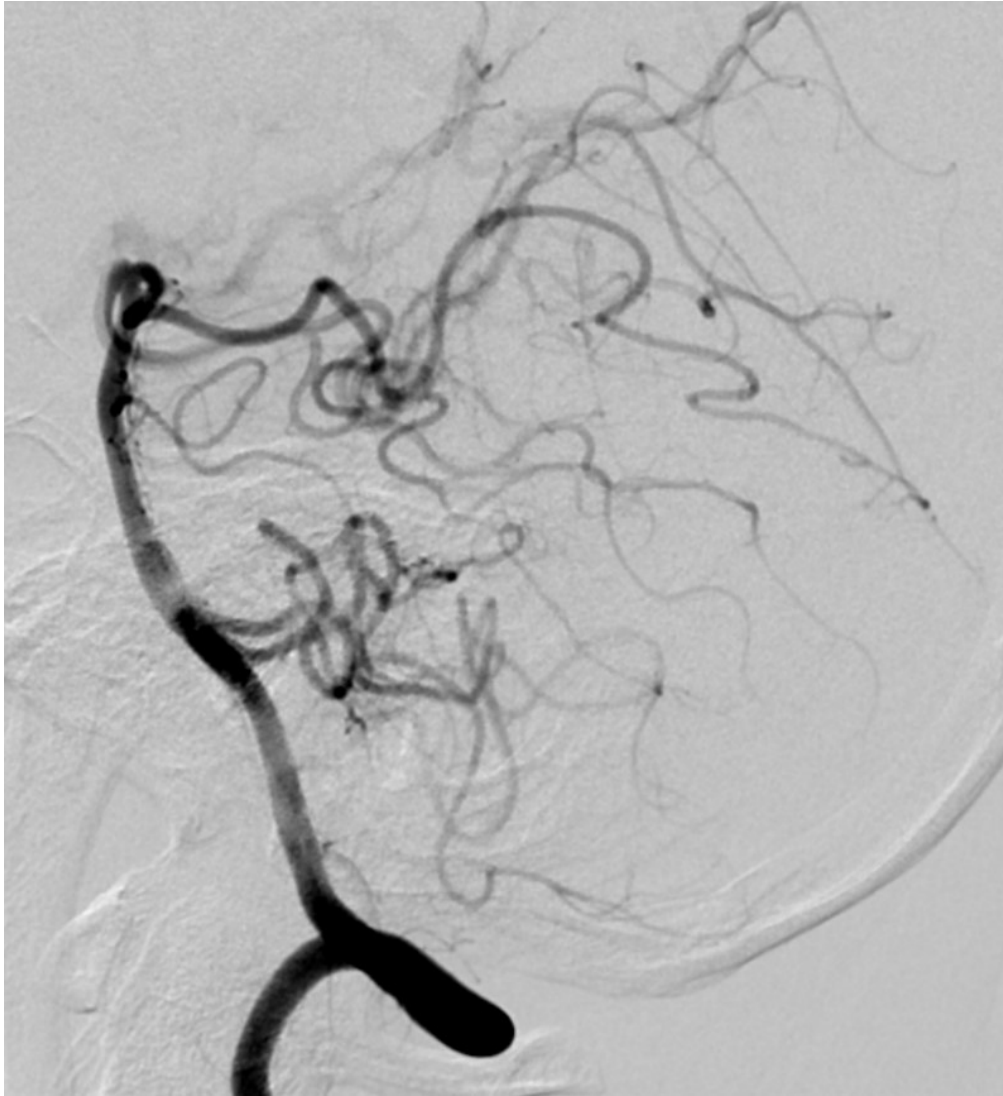


Figure2C

134x146mm (150 x 150 DPI)

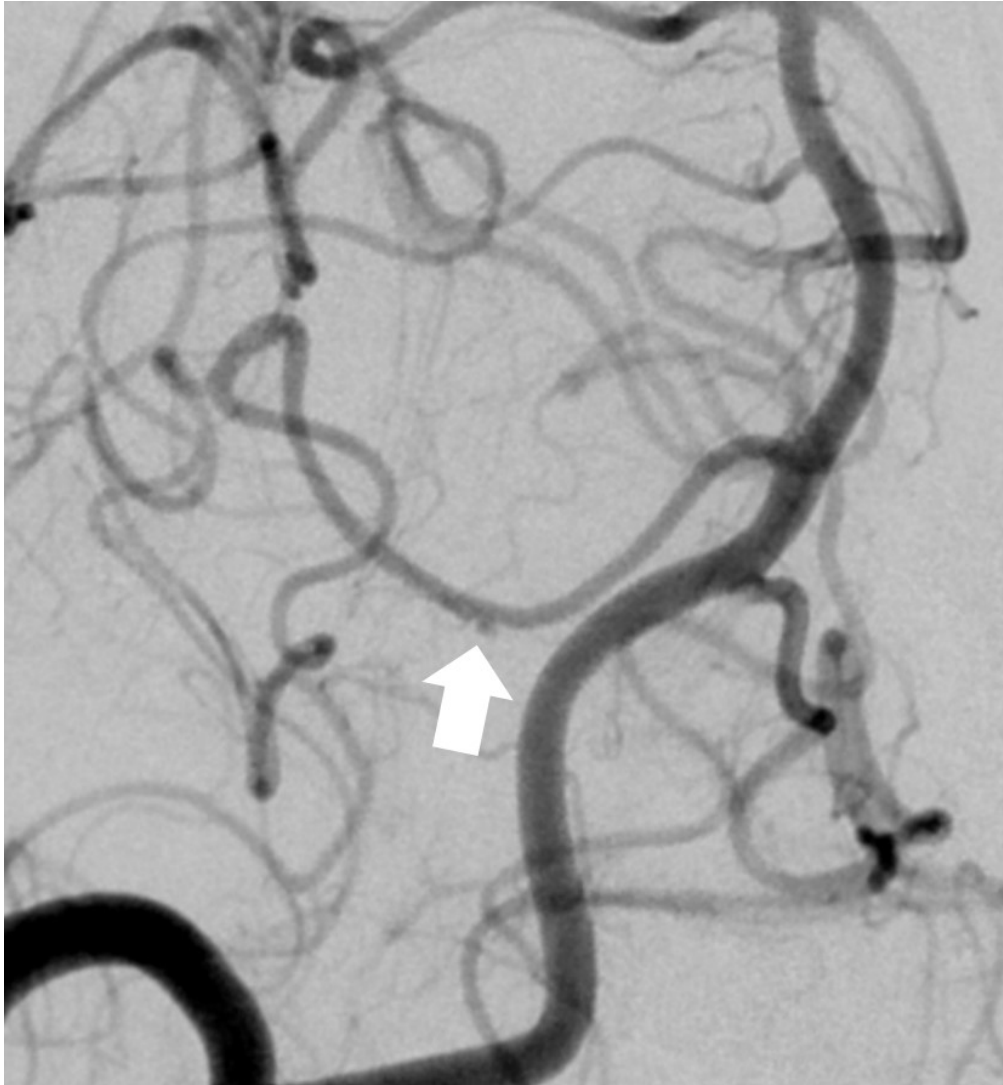


Figure2D

139x151mm (150 x 150 DPI)

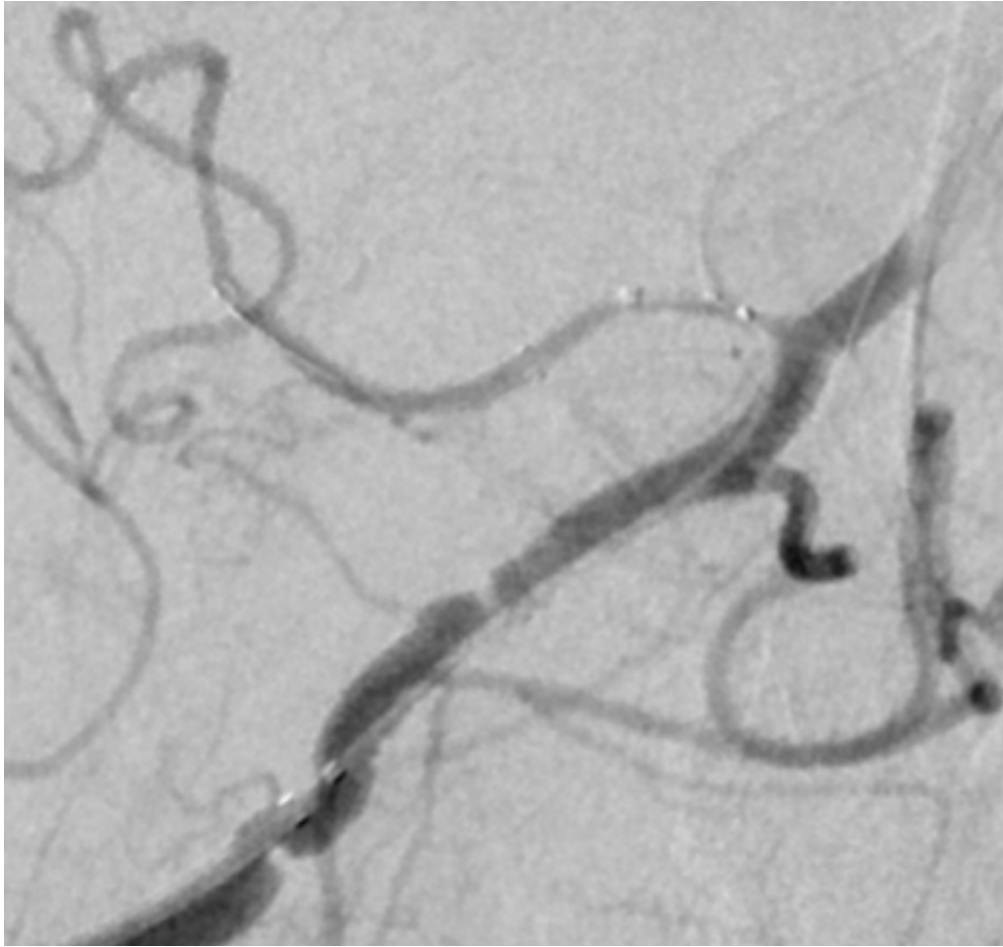


Figure3A

157x148mm (150 x 150 DPI)

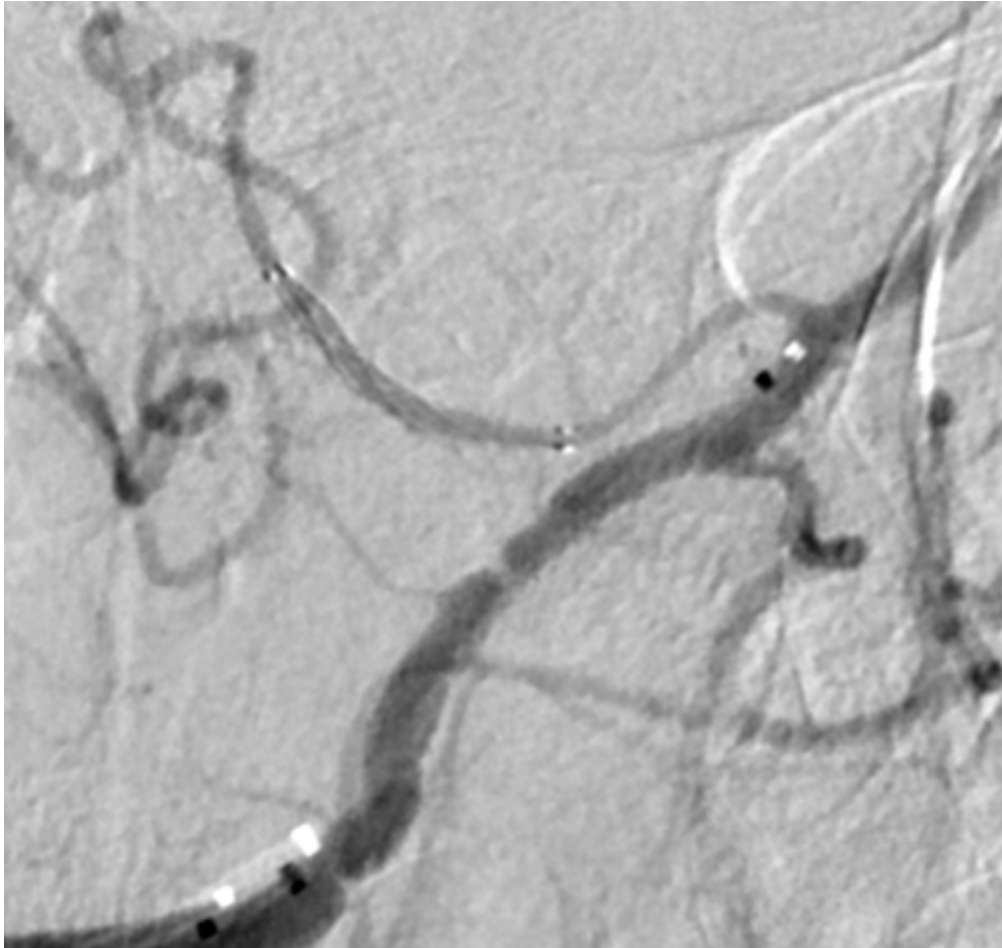


Figure3B

156x148mm (150 x 150 DPI)

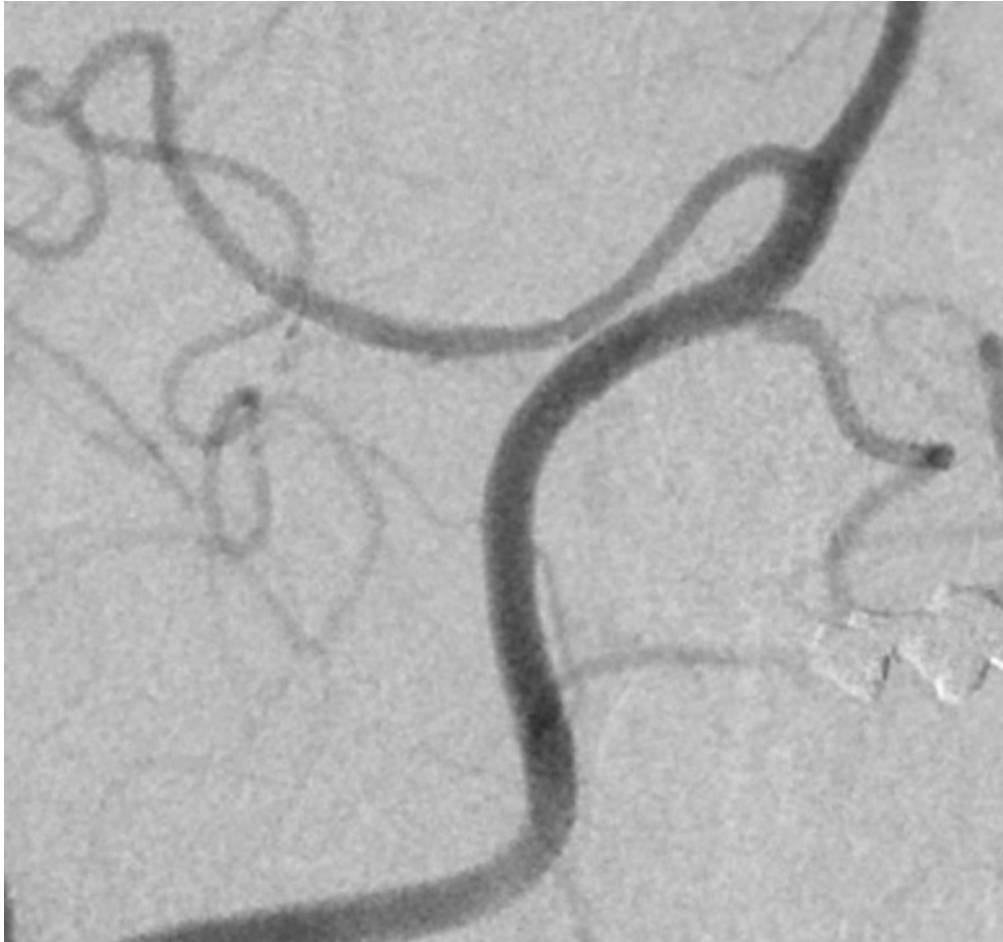


Figure3C

157x147mm (150 x 150 DPI)

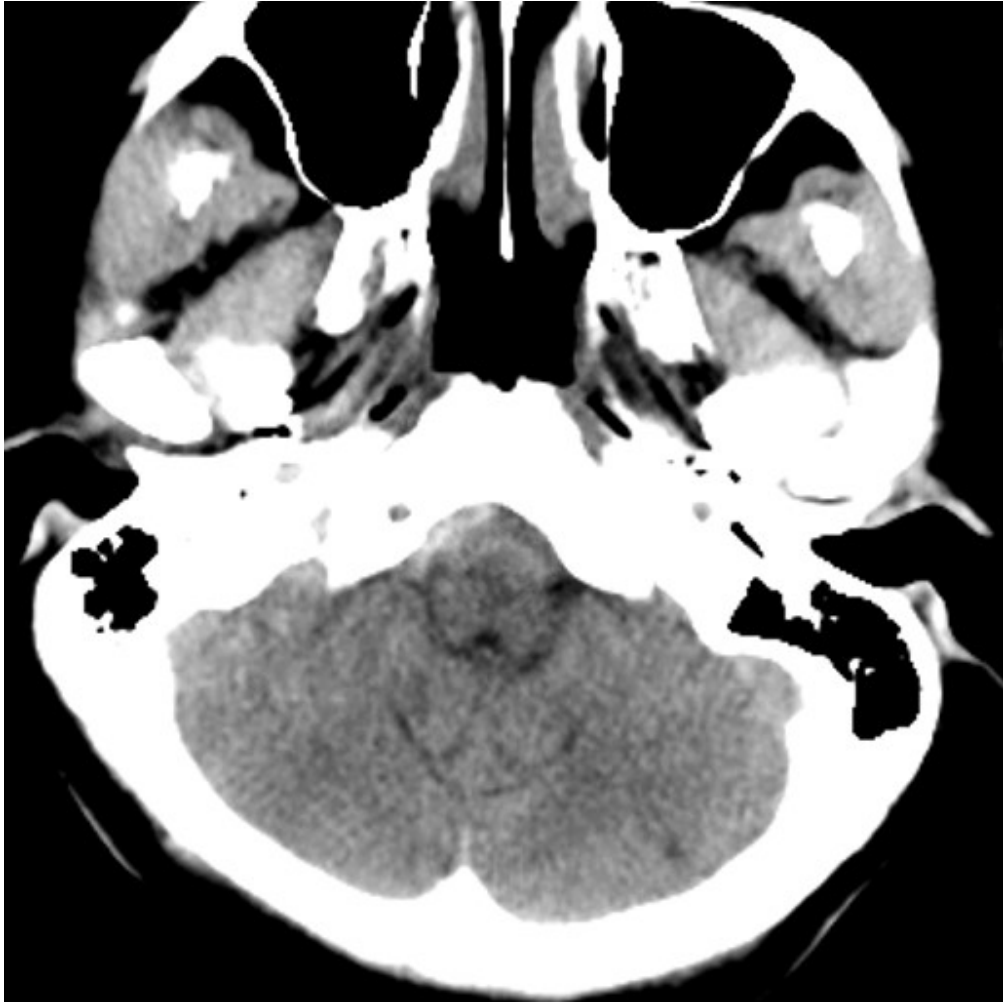


Figure4A

164x162mm (79 x 80 DPI)

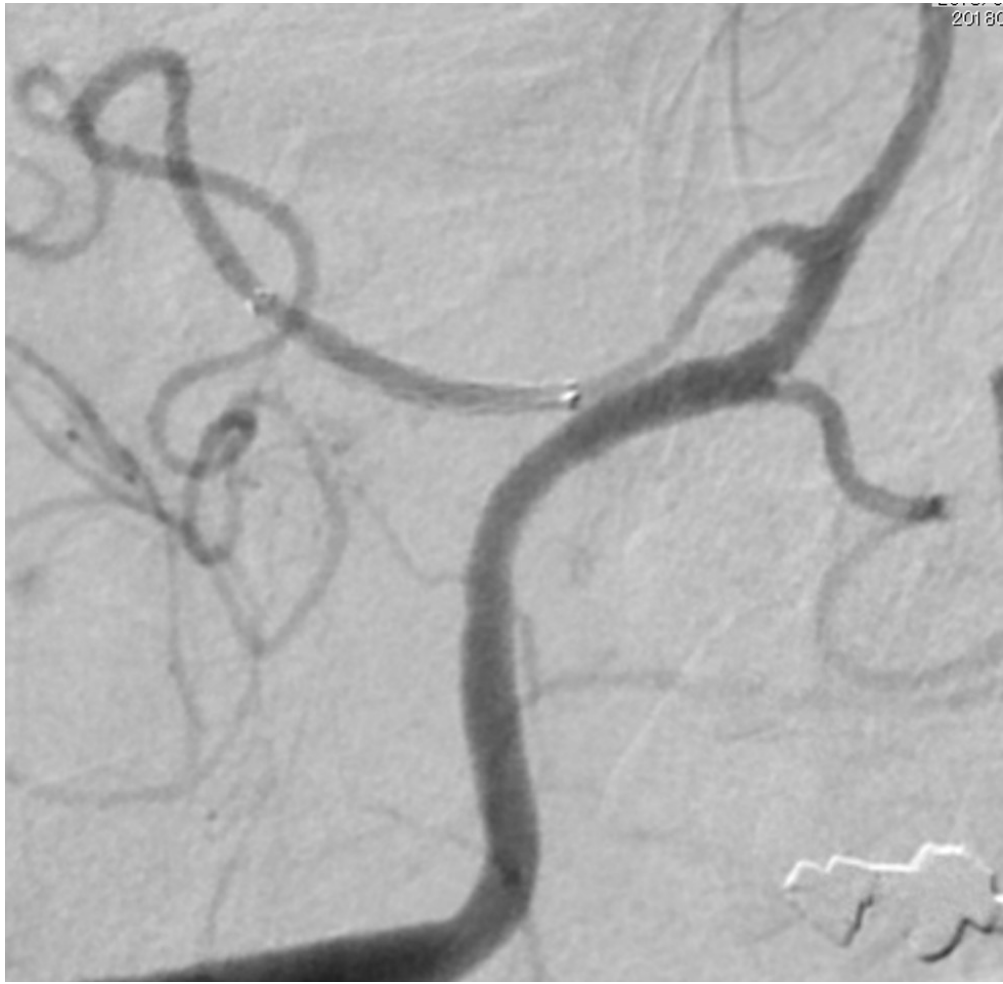


Figure4B

165x161mm (150 x 150 DPI)

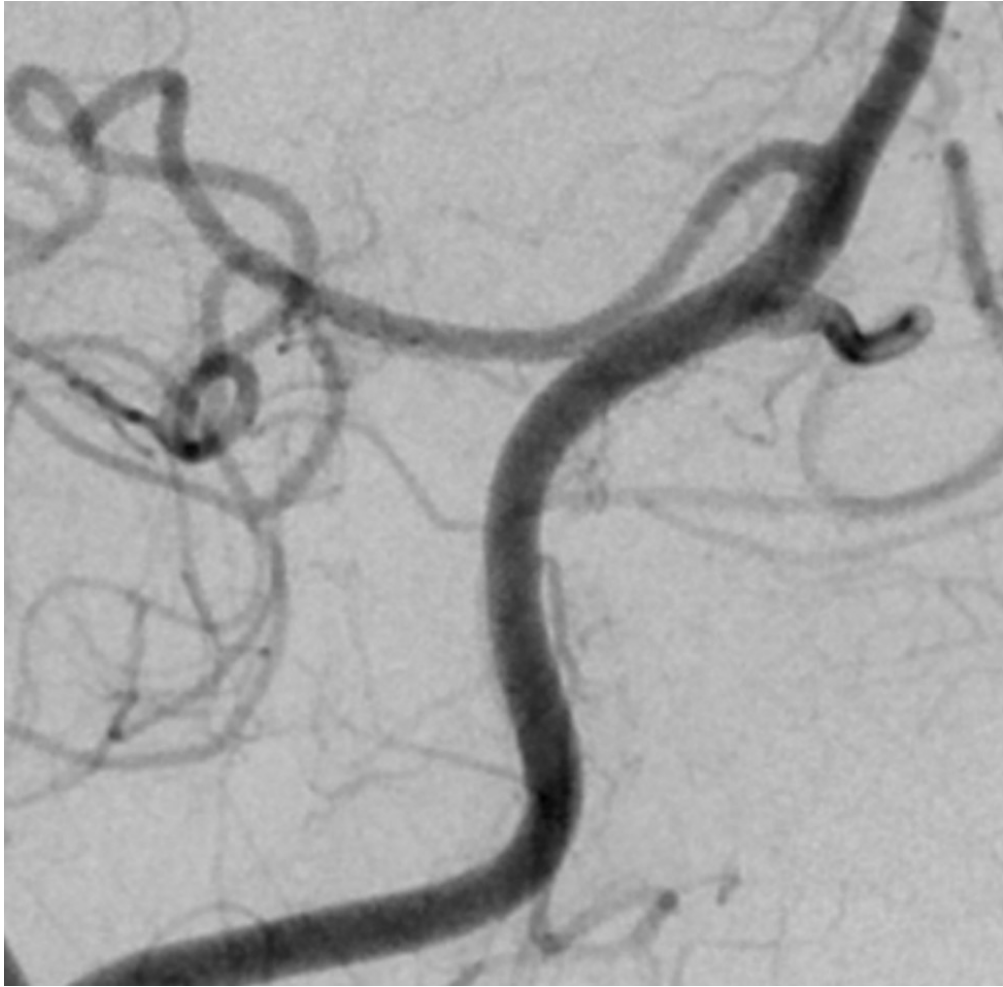


Figure4C

164x161mm (150 x 150 DPI)



Figure4D

163x160mm (104 x 106 DPI)