

- 1) 症例報告
- 2) 破裂脳底動脈本幹部血豆状動脈瘤に対してステント支援下コイル塞栓術を行った一例
- 3) 山村奈津美、岩田亮一、須山武裕、上野勝也、川野晴香、内藤信晶、李強、宮田真友子、李一、福田晃大、羽柴哲夫、吉村晋一、埜中正博、淺井昭雄
- 4) 関西医科大学脳神経外科
- 5) 山村 奈津美(関西医科大学附属病院 脳神経外科 〒573-1191 大阪府枚方市新町 2 丁目 3-1 tell: 072-804-0101 yamamurn@hirakata.kmu.ac.jp)
- 6) basilar trunk, blood-blister like aneurysm, stent-assisted coil embolization, LVIS,
- 7) 宣言
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致します。

和文要旨

目的

血豆状動脈瘤(Blood Blister like Aneurysm , BBA)は内頸動脈前壁に発生することが多く、その他の部位に発生した報告は少ない。我々は破裂脳底動脈血豆状動脈瘤に対して急性期にステント支援下コイル塞栓を行った1例を経験したため報告する。

症例

53歳女性、脳底動脈本幹部のBBA破裂によるくも膜下出血に対して緊急ステント支援下コイル塞栓術を施行、術中・術後に再破裂なく経過しmRS1で自宅退院した。術後7ヶ月後の脳血管撮影検査では再発なく、経過良好であることを確認した。

結論

BBAに対してステント支援下コイル塞栓術は、治療選択肢の1つとなり得る。

本文

Introduction

血豆状動脈瘤(Blood Blister like Aneurysm : BBA)は主に内頸動脈の非分岐部にできる動脈瘤であり、発生頻度としては全頭蓋内動脈瘤の2%未満、全内頸動脈瘤の6.6%未満である⁽¹⁾。内頸動脈以外の発生部位としては、前交通動脈や脳底動脈があるが、脳底動脈では報告例は少なく、破裂症例では16例の報告があるのみである⁽²⁻⁹⁾。

BBAの病態として内弾性板に微小な断裂が生じることで、外膜と

線維組織でのみ構成される小さな突出ができると考えられている⁽⁴⁾。それゆえに血管壁は薄く脆弱であり、開頭クリッピング術や瘤内コイル塞栓術では術中破裂のリスクが高く治療困難で、標準的治療方法はいまだ確立されていない。内頸動脈に発生した場合は、母血管閉塞にバイパスを併用した治療が行われることもある⁽¹⁾が、脳底動脈に発生した場合は、血行再建が困難で母血管閉塞を行うことはできない。

今回我々は破裂脳底動脈本幹部 BBA に対して超急性期にステント支援下コイル塞栓術を施行し、良好な経過を辿った症例を経験したので報告する。

Case Report

53 歳女性、排便時に突然の後頭部痛を自覚し救急搬送。来院時の血圧は 189/99mmHg、脈拍 74 回/分、意識レベルは GCS E3V4M6 の WFNS grade II で明らかな麻痺はなかった。既往歴に関節リウマチがあり、メトトレキサートと葉酸製剤の内服加療をされていた。頭部 CT 検査で右橋前槽に厚い Fisher grade3 のクモ膜下出血を認めた (**Figure.1A**)。偶然 3 年前撮像された MRA では、明らかな異常所見を認めなかった (**Figure.1B**) が、発症時 MRA では脳底動脈本幹部に瘤様突出を認め (**Figure.1C**)、MRI T1-VISTA (Volume isotropic turbo-spin-echo acquisition, 3D-T1-TSE 法, Philips Medical Systems, Eindhoven, Netherlands) では明らかな動脈解離の所見は認めなかった (**Figure.1D**)。緊急で脳血管撮影検査を行い、脳底動脈本幹部の mid portion に右向きで大きさ 2.5×4mm 程度の広頸

で床浅の瘤様突出を認めた(**Figure.2A**)。

治療方針：

3年前の画像検査では明らかな異常がないこと、動脈瘤の形態学的特徴から脳底動脈本幹部 BBA の破裂によるクモ膜下出血と診断した。治療方針として開頭クリッピング術ではアプローチが困難でかつ術中破裂のリスクが高いと判断した。一方血管内治療の場合、動脈瘤は広頸小型瘤でステント支援下による瘤内塞栓が必要と考えられた。適応外使用であることを家族に説明し同意を得て、緊急ステント支援下コイル塞栓術を企図した。術中の所見でコイル留置が困難であった場合は、一旦撤退の上 wait and watch して動脈瘤の形状変化を得てから再度ステント支援下コイル塞栓術を試みるか、Overlapping stent 術を施行する方針とした。

手術所見：

全身麻酔下に両側大腿動脈から 4Fr FUBUKI Dilator kit(朝日インテック,愛知)をそれぞれ両側 VA に留置し、ヘパリンを 5000 単位投与。抗血小板薬の loading を行うために、バイアスピリン 200mg とプラビックス 300mg を経鼻胃管より投与した。まずはステント留置用に Headway21(Micro Vention-Terumo, Tustin, CA, USA)を TACTICS(テクノクラートコーポレーション,愛知)を同軸にして左 PCA に留置した。続いて瘤内へのアプローチは、ダブルアングルにスチームシェイプした Excelsior SL-10 preshaped 45°(Stryker Neurovascular, Kalamazoo, MI, USA)を CHIKAI10(朝日インテック,愛知)用いて誘導した。LVIS blue4.5×10(Micro Vention-Terumo, Tustin, CA, USA)を動脈瘤部で出来るだけ mesh が密になるように

push and fluff technique で展開した。1st coil は Target 360 ultrasoft 2.0mm/4 cm(Stryker Neuro vascular, Kalamazoo, MI, USA)を留置。続いて Target 360 nano 1.5mm/2 cm を挿入、その後 Target 360 nano 1.5mm/2cm、Target 360 nano 1.0mm/2cm を 2 本留置した。コイルが瘤外血腫腔へ逸脱傾向であったため手技終了した。撮影では、やや neck remnant 認めていたが、ステント内血栓がないことを確認した(**Figure.2B**)。術直後の 5 倍希釈 cone beam CT でステントの展開が良好であること(**Figure.2C**)、頭蓋内出血の拡大がないことを確認し手術終了した。

術後経過：

術後 2 日目の MRI 検査では、脳梗塞は認めなかった(**Figure.2D**)。明らかな神経学的異常もなく、リハビリテーションや食事摂取を開始した。術後 10 日目と 11 日目でスパズムを認めたので塩酸フェスジルの動脈投与を行った。その後良好な経過を辿り、mRS1 で自宅退院した。術後 7 ヶ月後の脳血管撮影検査では再発なく、内皮の被覆化により neck remnant も消失していることを確認した(**Figure.2E**)。

Discussion

破裂脳底動脈本幹部 BBA はまれな疾患で、直達手術ではアプローチが困難であり、動脈瘤の形状から治療に難渋することが多い。BBA は病理学的に通常の嚢状動脈瘤と異なり、解離と考えられている。その病理学的特徴から直達手術では術中破裂率が高いため、手術方法もさまざまなものが報告されている。BBA は標準的な開

頭クリッピング術(neck clipping)では術中破裂や neck 避けの可能性が高く、動脈瘤を処理できないことが多い。再出血や再増大することも多く、開頭術では再出血が約 30%、再増大が約 4%、血管内治療では再出血が約 11%、再増大が約 34%である^(2-6,10)。内頸動脈 BBA においては wrapping clip の報告がある⁽¹¹⁾。この方法は全周性に剝離を行う必要があるが、脳底動脈における深部操作は困難であり、ただでさえ脆弱な動脈瘤周囲の安全な剝離は難易度が高い。術後の再発・再出血も報告されており、wrapping に用いる素材によっては晩期の肉芽形成・血管狭窄の可能性もある⁽¹²⁾。ただ、直達のクリッピング術に比して、脆弱な動脈壁の補強およびクリップの滑落防止という点で利点があると思われる。

近年の脳血管内治療の進歩により BBA に対する瘤内塞栓を安全に行ない得た報告が散見される⁽¹³⁾。嚢状である場合はバルーン支援下で瘤内塞栓ができる場合もあり、BBA は微小で広頸な動脈瘤であることが多いが、経時的に形状変化することがあり、コイル塞栓が可能な状態になるまで Wait and Watch してコイル塞栓する方法もある^(2,3)。これまでに報告された治療はほとんどが待機的に手術を予定している。ただ待機した場合、急性期の致命的な再破裂を予防できない可能性がある。また瘤内塞栓のみ行っても、病態を考慮すると再発の可能性が高く、再治療が必要となる場合が報告されている^(2,3)。BBA に対する血管内治療の種類としては wait and watch 後にコイル塞栓術の他に、Overlapping stent、Stent assist coil、Flow Diverter stent による治療方法がある。

Shah らの報告では、内頸動脈 BBA に対する開頭術と血管内治療

とを比較した meta-analysis では、動脈瘤自体の閉塞率は開頭術のほうが高いものの、血管内治療の方が開頭術よりも合併症率が低く機能予後も良好であり、今後のデバイスの改良などでさらに治療成績が向上する可能性はある⁽¹⁴⁾。

自己拡張型ステントが広頸動脈瘤に導入され、母血管に scaffold を形成することで、瘤内にコイルを留置する際に母血管への逸脱を防ぐことができる。自己拡張型ステントには、このような scaffold effect に加えて、flow diversion 効果がある⁽¹⁵⁾。Bulsara らは、破裂 BBA に対して、ステント単独による治療を報告している⁽¹⁶⁾。彼らは瘤内にコイルを留置することなく、ステント留置のみで治療を行った。しかしながら、自己拡張型ステント単独では、完全閉塞を誘導するには、flow diversion 効果が少ないと考える報告もある⁽³⁾。また閉塞するまでに時間がかかるため、その間は急性期破裂を予防できないという欠点もある。

Walsh らは、複数のステントを重畳させる治療方法 Overlapping stent を報告した⁽¹⁷⁾。複数のステントを母血管に重ねることで、flow diversion 効果を増強させることができる。そのため瘤にかかる血行力学的ストレスを軽減でき、さらには血管内皮化を助長できる。Overlapping stent による治療では良好な成績が得られており、これらの結果は BBA に対して flow diversion 効果を意図した治療戦略の有効性を示唆している^(16,17)。しかし、ステント 2 枚を重畳させることは血栓症のリスクが高いことが危惧される。そこで我々は、ステント 1 枚によるステント支援下コイル塞栓が可能であれば即日治療とし、瘤内塞栓が困難でステント 2 枚重ねが

必要な場合は、抗血小板薬を投与してから治療を行うか、もしくは瘤内塞栓ができるまで動脈瘤の形状変化を待つ方針を検討した。

Flow Diverter stent は、巨大動脈瘤に対する新規の血管内治療デバイスである。従来の自己拡張型ステントに対して、より少ない多孔性で高い金属被覆率を有している。Aydin らは、破裂 BBA に対して Flow Diverter stent を用いて治療を行った 11 例を報告している⁽⁴⁾。11 例全例において手技は成功、急性期の合併症は認めず、3 カ月と 6 カ月の時点の脳血管撮影では動脈瘤の閉塞が確認できた。92% の患者は臨床的にも予後良好であった。以上の治療成績からは Flow Diverter stent を用いた治療戦略は有効と思われる。一方で、後方循環に対して、Flow Diverter stent を使用した成績は合併症が多いという報告がある⁽¹⁸⁾。理由として、Flow Diverter stent は孔が少なく金属被覆率が高いため、内頸動脈より穿通枝の多い脳底動脈に留置すると穿通枝閉塞から虚血性脳卒中を引き起こす可能性があるからである。脳底動脈 BBA に対しては Flow Diverter stent や Overlapping stent など金属被覆率の高くなるステント留置は注意が必要である。

また、Flow Diverter stent は留置後速やかに血行力学的ストレスを軽減でき、ステント支援下コイル塞栓術と違い瘤内操作がない分術中破裂のリスクは少ないが、動脈瘤の完全な血栓化閉塞には数週間を要する。この潜在期間は、動脈瘤再破裂の危険性が存在する。BBA は急性期の再破裂リスクが高いため、破裂予防するという観点からは不十分である可能性がある。また破裂動脈瘤急性

期に対する抗血小板薬の使用に関しても問題があるが、破裂瘤に対するステント支援下コイル塞栓術において、抗血小板薬の使用による合併症発生率は許容可能な範囲内であるという報告もある⁽¹⁹⁾。問題点として、Pipeline に代表される Flow Diverter stent の破裂脳動脈瘤に対する使用は、今回の治療方法と同様本邦では現時点で適応外である。

我々が渉猟し得た限り、破裂脳底動脈 BBA に関しては自験例を含めると 17 例の治療例が報告されており⁽²⁻⁹⁾、その中の 10 例で血管内治療が施行されている (Table.1)。1 例は開頭手術との併用療法だった。患者の年齢は 44～68 歳、平均 52 歳で、性差は 10 例中 7 人女性と女性に多い。動脈瘤の大きさに関しては、10 例全例が 3mm 以下の極小で広頸瘤であった。治療時期としては我々の一例ともう一例を除いた 8 例で待機的に行われていた。治療方法としては 10 例中 4 例がステント支援下コイル塞栓術であり、3 例は Overlapping stent、2 例は Flow Diverter stent、1 例はクリッピング術とステント留置の併用療法が行われていた。62 歳女性の例では、はじめに 2 枚の LVIS Jr. stent を使用した Overlapping stent で治療され、その後さらにもう一枚 LVIS Jr. stent を重ねコイル塞栓も施行されている。この症例では合併症として橋梗塞を発症しており⁽⁶⁾、やはり脳底動脈において金属被覆率の高いステント留置は穿通枝拘束のリスクを上昇させる可能性がある。

我々は今回 flow diversion 効果の高いステントを使用し、瘤内塞栓も行った。LVIS stent は Braided stent であり、Laser cut stent と比べると金属被覆率が高いため Flow diversion 効果が高い。Chao

らの報告によれば、LVIS stent 1 枚の flow diversion 効果は、2 枚重ねの Overlapping stent よりも高く、Flow Diverter stent 1 枚より低かった⁽²⁰⁾。また 2 枚重ねの LVIS stent の flow diversion 効果は Flow Diverter stent 1 枚よりも高かった⁽²⁰⁾。ステント支援下瘤内塞栓術を選択した場合、ステント展開中にマイクロカテーテルが滑落(瘤内より逸脱)する可能性を考えると、LVIS stent は視認性に優れ、リシースが可能である点も重要な特徴であり、術中慎重な操作を心がけ、必要ならば展開し直すことができるのは大きな利点と考えられる。

問題点としては、ステント留置による血栓性合併症の可能性があり、抗血小板薬投与が必要となる。また極小の動脈瘤に対してコイルが留置できない場合は stent in stent も考慮が必要だが、さらに血栓性合併症の可能性が高くなり、また穿通枝閉塞の可能性も高くなると考えられる。Overlapping stent の場合のステント選択については今後の更なる症例の蓄積と検討が必要と考えられる。他に、現時点では保険使用適応外であることや、一旦留置した後に再発してしまった場合、LVIS stent は金属被覆率が高いために、瘤内塞栓は困難である点も問題点の一つである。海外の報告では、同様の動脈瘤は Flow Diverter stent で治療されていることが多い。

Conclusion

脳底動脈血豆状動脈瘤に対してステント支援下コイル塞栓術を行った 1 例を経験した。ステント併用すれば瘤内コイル塞栓術は、施行可能な場合があり、厳重な follow が必要なものの、治療選択

肢の1つとなり得る。

Disclosure Statement

筆頭著者は日本脳神経外科学会のCOI自己申告をすでに完了しており、本論文の発表に関して開示すべきCOIはありません。

References

- 1 Meling TR, Sorteberg A, Bakke SJ, et al. Blood blister-like aneurysms of the internal carotid artery trunk causing subarachnoid hemorrhage: treatment and outcome. *Neurosurgery*. 2008;108:662-671.
- 2 Meckel S, Singh TP, Undren P, et al. Endovascular treatment using predominantly stent-assisted coil embolization and antiplatelet and anticoagulation management of ruptured blood blister-like aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol* 2011;32:764-71.
- 3 Lim YC, Kim BM, Suh SH, et al. Reconstructive Treatment of Ruptured Blood Blister-like Aneurysms With Stent and Coil. *Neurosurgery* 2013;73:480-488,
- 4 Aydin K, Arat A, Sencer S, et al: Treatment of ruptured blood

- blister-like aneurysms with flow diverter SILK stents. J Neurointerv Surg 2015;7:202-209,
- 5 Kim YJ, Ko JH. Sole Stenting with Large Cell Stents for Very Small Ruptured Intracranial Aneurysms. Interventional Neuroradiology 2014;20:45-53
 - 6 Morinaga Y, Nii K, Eto A, et al: Overlapping Stent-assisted Coil Embolization for Ruptured Blood Blister-like Aneurysms of Basilar Trunk: Two Case Reports. Journal of Neuroendovascular Therapy 2019;13:174-182
 - 7 R Almefty, R Spetzler, Microsurgical Clipping of a Blister-like Basilar Tip Aneurysm: 2-Dimensional Operative Video OPERATIVE NEUROSURGERY 2018;14:593-594
 - 8 M Mooney, M Kalani, P Nakaji, et al. Long-term Patient Outcomes After Microsurgical Treatment of Blister-Like Aneurysms of the Basilar Artery OPERATIVE NEUROSURGERY 2015;3:387-393
 - 9 J Konczalla¹, F Gessler¹, M Bruder et al. Outcome After Subarachnoid Hemorrhage from Blood Blister-Like Aneurysm Rupture Depends on Age and Aneurysm Morphology WORLD

- 10 Gonzalez A, Narataa A, Yilmaz H Blood blister-like aneurysms: Single center experience and systematic literature review European Journal of Radiology 2014;83:197–205
- 11 Nishi T, Kaji M, Koga K, et al. Clipping on Crossed Wrapping Method for Ruptured Blood Blister-Like Aneurysm of the Internal Carotid Artery: Technical Note and Long-Term Results. World Neurosurg X. 2019;2:100005.-10.1016
- 12 Lee DW, Binning MJ, Shanmugam VK, et al. Muslin-induced intracranial vasculopathic stenosis: a report of two cases. Clin Neurol Neurosurg. 2012 Jan;114(1):63-7.
- 13 Iwata R, Suyama T, Hashiba T, et al. Traumatic Anterior Choroidal Artery Aneurysm:Case report. Neurosurg Emerg 2018;24:2:196-200.
- 14 Shah SS, Gersey ZC, Nuh M, et al. Microsurgical versus endovascular interventions for blood-blisters aneurysms of the internal carotid artery: systematic review of literature and meta-analysis on safety and efficacy. J Neurosurg. 2017 Dec;127(6):1361-1373.

- 15 Pumar¹ JM, Arias-Rivas¹ S, Rodríguez-Yáñez¹ M, et al. Using Leo Plus stent as flow diverter and endoluminal remodeling in endovascular treatment of intracranial fusiform aneurysms. *J Neurointerv Surg.* 2013 Nov;5 3:iii22-7.
- 16 Bulsara KR, Kuzmik GA, Hebert R, et al. Stenting as monotherapy for uncoilable intracranial aneurysms. *Neurosurgery.* 2013 Sep;73:80-85.
- 17 Walsh KM, Moskowitz SI, Hui FK, et al. Multiple overlapping stents as monotherapy in the treatment of 'blister' pseudoaneurysms arising from the supraclinoid internal carotid artery: a single institution series and review of the literature. *J Neurointerv Surg.* 2014 Apr;6(3):184-194.
- 18 Piano M, Valvassori L, Lozupone E, et al. FRED Italian Registry: a multicenter experience with the flow re-direction endoluminal device for intracranial aneurysms. *J Neurosurg* 2019 May;10:1-8

19 Martin AR, Cruz JP, Matouk CC, et al. The pipeline flow-diverting stent for exclusion of ruptured intracranial aneurysms with difficult morphologies. *Neurosurgery*. 2012 Mar;70:21-28;

20 Chao W, Zhongbin T, Jian L, 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.

Figure Legends

Figure.1

A: Initial head CT showed subarachnoid hemorrhage in predominantly right prepontine cistern.

B: No aneurysm at basilar trunk on MRA performed 3 years ago.

C: Very small aneurysm(arrow) on MRA performed at the onset

D: Volume isotropic turbo-spin-echo acquisition(VISTA) showed a small aneurysm(arrow) and no intraluminal hematoma in basilar artery.

Figure.2

A: Pretreatment right VA angiography showed a small wide neck on Basilar trunk aneurysm(arrow).

B: Posttreatment left VA angiography showed almost complete

aneurysm occlusion(arrow).

C: Cone beam CT showed coil and stent deployed partially tight at aneurysm.

D: No infarction on MRI examination on the second day after operation

E: Seventh month follow-up angiography showed complete aneurysm occlusion(arrow).

Table.1 Cases of endovascular treatment for ruptured blood blister-like aneurysm of the basilar artery

NA : Not Available

H&H: Hunt and Hess

Table.1 Cases of endovascular treatment for ruptured blood blister-like aneurysm of the basilar artery

Author/Year	Age	Sex	Size(mm)	Grade(H&H)	Timing(Day)	Treatment	Complications	Rebleeding	Outcome(mRS)
Meckel/2011	49	F	2.1×4.8	4	6	stent-assisted coil	None	None	1
	44	F	2.0×3.0	3	NA	stent-assisted coil	None	None	0
Yong/2013	45	F	NA	2	NA	stent-assisted coil (3 stents)	None	None	0
Young/2014	53	M	2.1×2.0	2	within 48hours	stents (Neuroform, Enterprise)	None	None	0
Michael/2014	49	F	2.5×1.0	1	NA	Cotton Clip + stent	None	None	1
Aydin/2015	47	F	2.0×2.5	1	15	Flow Diverter stent	None	None	1
	68	NA	2.5×4.0	2	8	Flow Diverter stent	None	None	0
Morinaga/2019	52	M	2	4	10	stents (2 LVIS Blue)	None	None	3
	62	F	1.7	1	5, 14	stent (2 LVIS Jr.) → stent-assisted coil (3 stents)	infarction of right pons	None	1
Present case	53	F	2.5×4.0	2	1	stent-assisted coil (1 stent)	None	None	0

Fig 1A

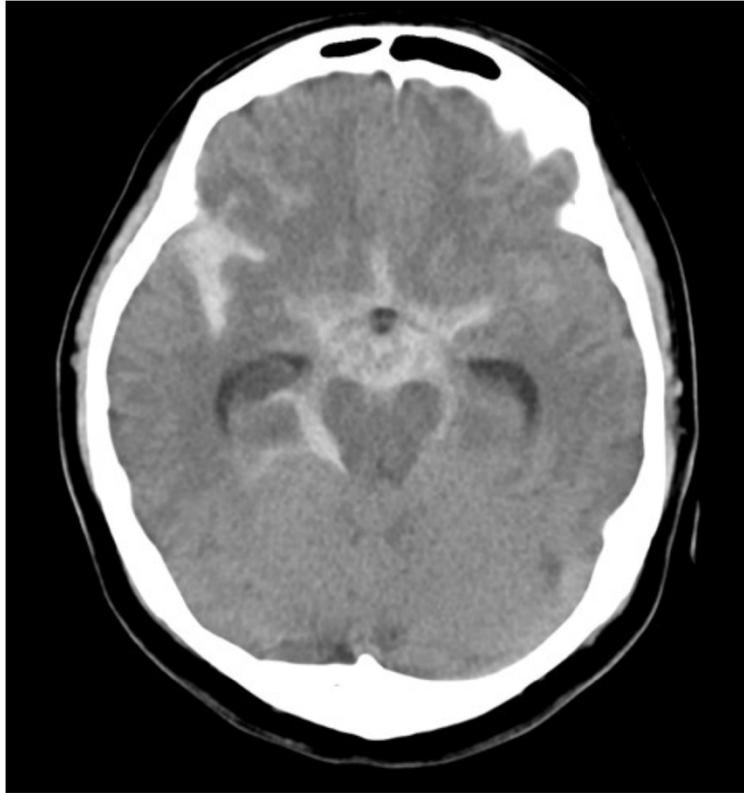


Fig.1A

199x190mm (381 x 381 DPI)

Fig 1B



Fig.1B

199x190mm (381 x 381 DPI)

Fig 1C

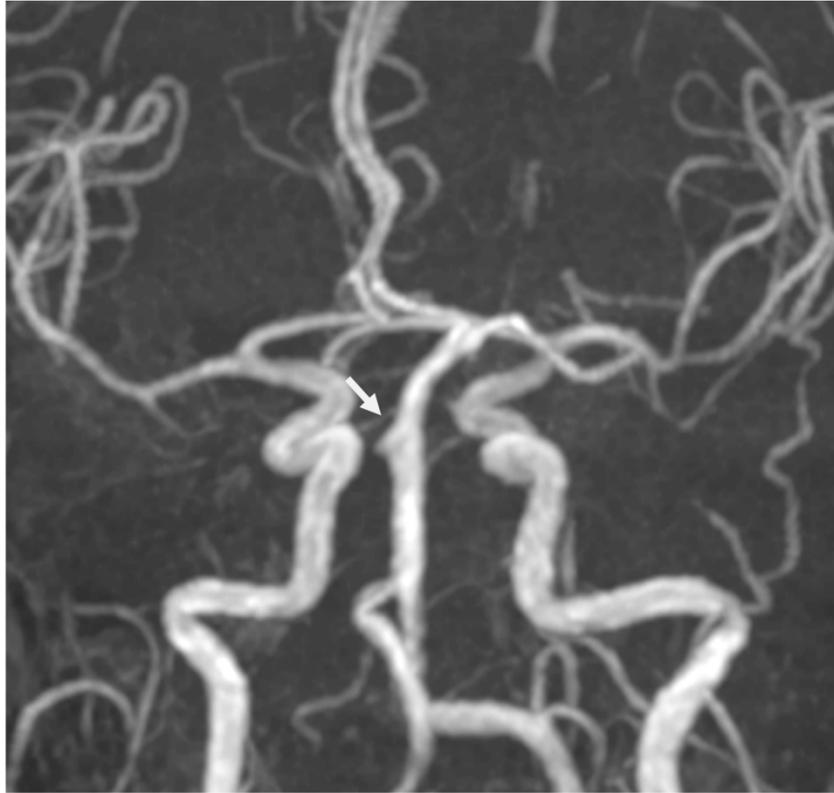


Fig.1C

199x190mm (381 x 381 DPI)

Fig 1D

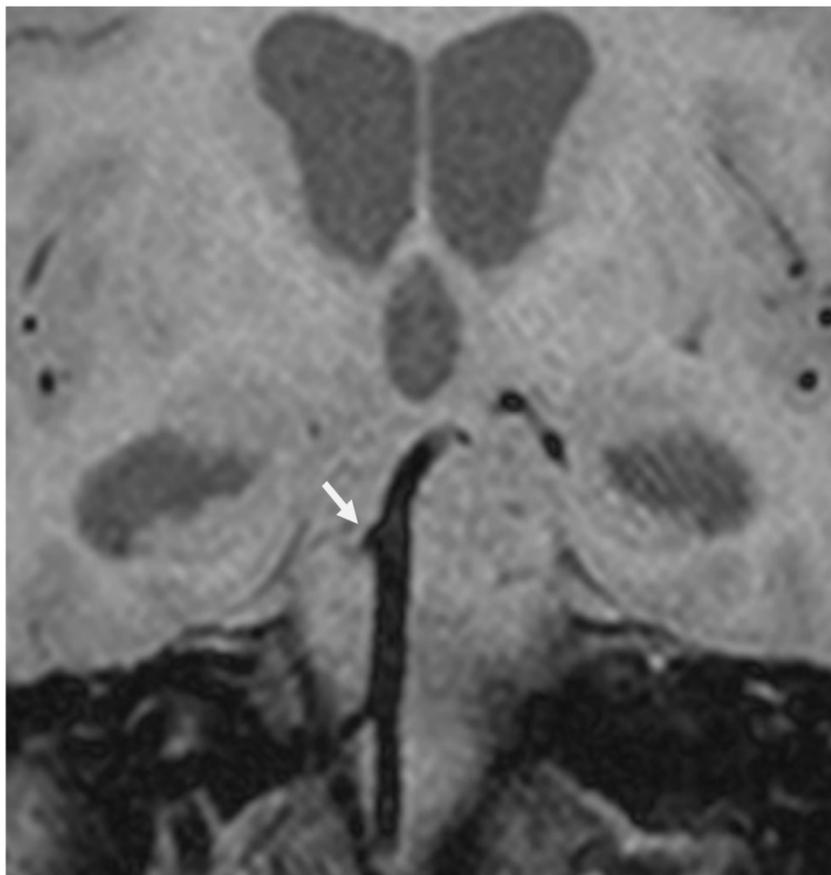


Fig.1D

199x209mm (381 x 381 DPI)

Fig 2A



Fig.2A

199x190mm (381 x 381 DPI)

Fig 2B



Fig.2B

199x190mm (381 x 381 DPI)

Fig 2C

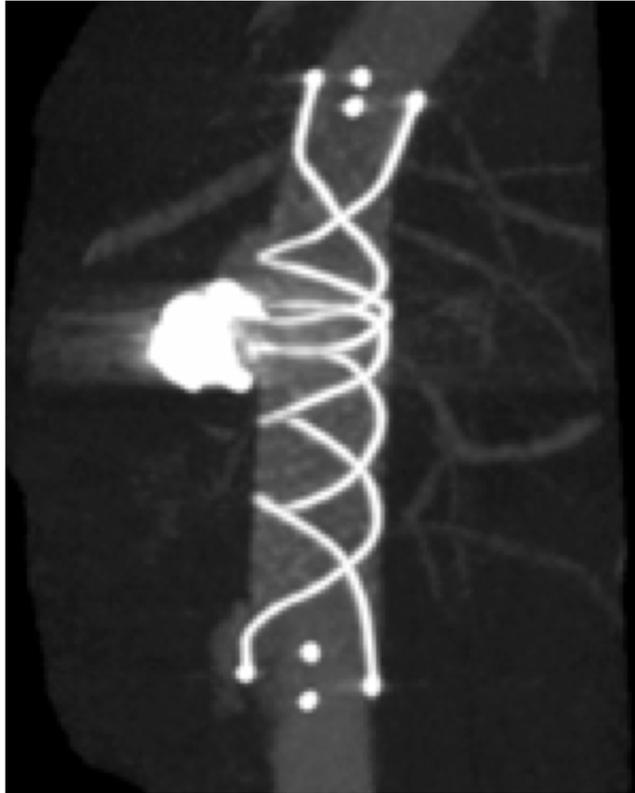


Fig.2C

199x190mm (381 x 381 DPI)

Fig 2D

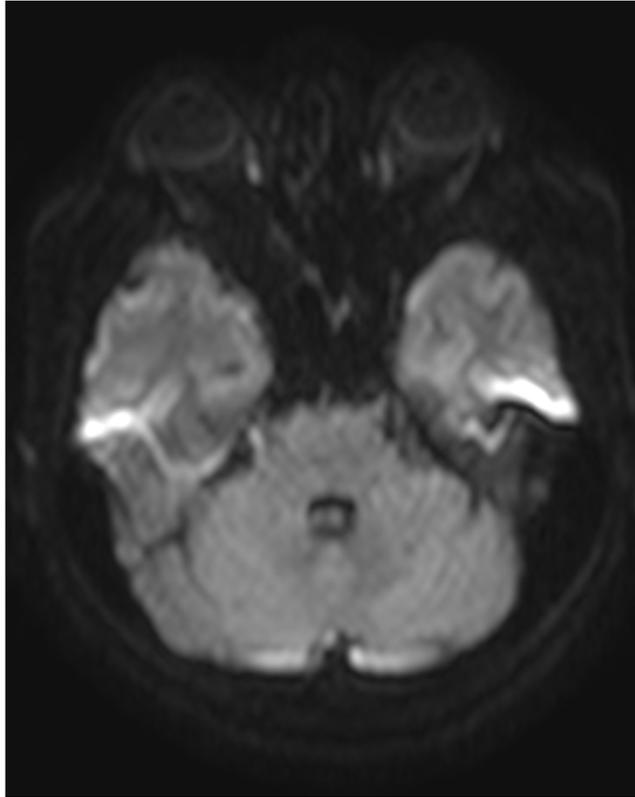


Fig.2D

199x190mm (381 x 381 DPI)

Fig 2E

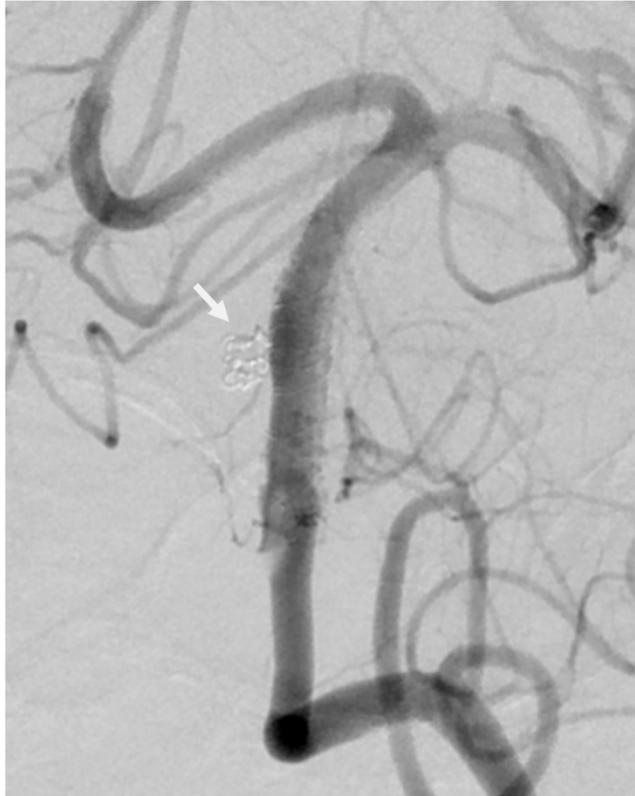


fig.2E

199x190mm (381 x 381 DPI)