

症例報告

急激な増大を認めた破裂growing basilar artery dissecting aneurysmに対しステントオーバーラップで治療した1例

Overlapping stent placement with coil embolization for ruptured growing basilar artery dissecting aneurysm: a case report

井上悟志¹⁾、藤田敦史²⁾、溝脇 卓¹⁾、李 泰辰¹⁾、黒田竜一¹⁾、潤井誠司郎¹⁾、栗原英治¹⁾、甲村英二²⁾

1) 順心病院 脳神経外科

2) 神戸大学大学院 医学系研究科 脳神経外科学分野

Satoshi INOUE¹⁾, Atsushi FUJITA²⁾, Takashi MIZOWAKI¹⁾, Te Jin LEE¹⁾, Ryuichi KURODA¹⁾, Seishirou URUI¹⁾, Eiji KURIHARA¹⁾, Eiji KOHMURA²⁾

1) Department of Neurosurgery, Junshin hospital

2) Department of Neurosurgery, Kobe University Graduate School of Medicine

筆頭著者の連絡先

井上悟志

〒 675-0122

兵庫県加古川市別府町別府 865-1

順心病院脳神経外科

電話 079-437-3555

FAX 079-437-6785

Satoshi INOUE, M.D., Ph.D.

Department of Neurosurgery, Junshin Hospital, 865-1 Befu, Befu-cho,
Kakogawa-city, Hyogo, Japan

E-mail: nsurg2000@yahoo.co.jp

TEL: 81-79-437-3555

FAX: 81-79-437-6785

Key Words: subarachnoid hemorrhage, basilar artery, ruptured dissecting aneurysm, flow diverting stent, endovascular treatment

図 4 点

宣言

本論文を、日本脳神経血管内治療学会機関紙「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。

要旨

1

2 目的:急激な増大を認めた解離性脳底動脈瘤に対し、コイル塞栓併用によ
3 るステントオーバーラップが有用であったため報告する。

4 症例:50歳女性。くも膜下出血で発症し、脳底動脈に解離性動脈瘤を疑う
5 紡錘状の血管拡張を認めた。Day 9からDay 16に同部の急激な増大を認
6 め、Day 18に脳底動脈にステントを重ねて留置し、増大部を疎にコイル塞栓
7 した。神経脱落症状なく退院し、8か月後のDSAでBAのリモデリングを認め、
8 29か月経過時も再発を認めず。

9 結論: 解離性脳底動脈瘤に対しステントオーバーラップで良好な血管リモデ
10 リングを得た。

11 (267字)

12

13

14

緒言

Basilar artery dissecting aneurysm (BADA)は若年成人に多く¹⁾、頻度は0.25人/10万人・年で、全てのSAHの1.0%である²⁾。本疾患は予後不良で、なおかつその解剖学的位置から治療も困難であることが多い。なかでも、経時的に増大するgrowing BADAは非常に稀な病態で、治療リスクの高さから虚血例では多くの症例で保存的加療が選択される。出血例では再出血予防のため治療が必要となるが、直達手術・血管内治療とも未だ困難である。

今回我々は、くも膜下出血で発症し、経過中に急激な増大を認めたgrowing BADAに対し、コイル塞栓を併用したoverlapping stent therapyを亜急性期に施行し良好な経過を得た症例を経験したので報告する。

症例提示

50歳女性。入浴中に倒れているのを発見された。初診時、Japan Coma Scale II-30, Glasgow Coma Scale 10で、頭部CTでくも膜下出血を、3D-CTAで脳底動脈に解離性動脈瘤を疑う紡錘状の血管拡張を認め(Fig. 1 A, B)、Hunt and Hess grade 3、World Federation of Neurological Surgeons grade 4、Fisher group 3と診断した。翌日のDSAでも同様の所見で(Fig. 2 A)、急性期の根治術は困難と判断し、保存的加療を開始、propofolで鎮静し中心静脈栄養管理とした。

Day 9のMRAでは形態変化はわずかであったが(Fig. 2 B)、Day 16のMRAではBAの径はさらに拡張し、加えて右側には囊状の増大部を認めた(Fig. 2 C)。再破裂の危険性が高いと判断し、informed consentのうえ、

1 Day 18 に血管内治療を行った。治療前日、clopidogrel 300mg を経口投
2 与した。

3 血管内治療：全身麻酔導入後、全身へパリン化し、経鼻胃管から
4 aspirin 300mg を投与した。両側大腿動脈から両側 vertebral artery
5 (VA)に 6F guiding catheter (Fubuki, ASAHI INTEC, Aichi, Japan)
6 を留置した。DSA で、囊状の増大部は長径 5.2mm、BA 本幹は横径
7 5.7mm であった (Fig. 3 A, B)。Excelsior SL10 (Stryker
8 Neurovascular, Fremont, CA, USA)を Chikai 10 (ASAHI INTEC,
9 Aichi, Japan)で右 PCA へ導入し、Chikai 14 (ASAHI INTEC)で
10 Prowler Select Plus (Codman Neurovascular, Miami Lake, FL,
11 USA)と交換した。次いで、SL10 を増大部中央やや奥へ留置したが、wire
12 は近位では Chikai 10 を、病変部では Silverspeed 10 (Medtronic,
13 Minneapolis, MN, USA)を使用した。Prowler Select Plus を用いて
14 Enterprise VRD 4.5×37mm (Codman Neurovascular) を右 PCA から
15 左 VA に留置し (Fig. 3C-E 白矢印：近位マーカー、黒矢印：遠位マーカー)、
16 直後の DSA で増大部の造影効果はやや低下した。Prowler Select
17 Plus を Chikai 14 を用いてステント内を通過させて右 PCA へ再度挿入し、
18 同サイズの Enterprise VRD を重ねて留置した (Fig. 3C-E 白矢頭：近位
19 マーカー、黒矢頭：遠位マーカー)。DSA では左 VA と BA の角度が直線化し、
20 増大部の造影効果は著明に減少した (Fig. 3 D)。続いて、増大部の血栓
21 化を促す目的で同部に under size のコイルを留置した。HydroSoft
22 4mm×10cm (Terumo, Tokyo, Japan)を 1 本挿入した時点で、同部の造
23 影効果は消失し、以降も瘤壁にストレスをかけない疎なパッキングに努め、
24 HydroSoft coil を合計 4 本 25cm 挿入した。DSA では増大部の造影は完

1 全消失し、BA 本幹の血管拡張部はステント外に造影効果が残存したがコイ
2 ル追加は行わず終了した (Fig. 3 E)。

3 術後に新たな神経症状の出現なく経過し、治療 1 か月後の DSA で再発
4 を認めなかった。急性期の鎮静による廃用のため回復期リハビリテーション病
5 院へ転院ののち、神経脱落症状なく自宅退院した (modified Rankin
6 Scale 0)。治療 8 か月後の DSA では病変の再増大を認めず、拡張した BA
7 本幹の血管径も正常化する一方で、同部からの主要分枝は温存されていた
8 (Fig. 3 F)。この時点で clopidogrel を終了し、以後は aspirin 単剤を継
9 続した。以降、DSA は同意が得られず、MRA、MR cisternography、
10 basi-parallel anatomical scanning でフォローを行い、治療 21 か月後も
11 変化なく、治療後 29 か月時も外来通院中である。

12

13

14

考察

15 BADA は稀な疾患で、保存的加療での morbidity、mortality は高いが、
16 clipping、wrapping などの直達手術は困難である^{1,3,4)}。親血管閉塞や
17 trapping は高い止血効果を得られる反面、BA に対しては困難なことが多く
18 ⁵⁾、近位 BA 閉塞・flow reversal だけでは効果が不確実であるという報告が
19 多い^{1,3,4,5)}。近年では、stent-assisted coiling (SAC)、stent-only
20 therapy、flow diverter (FD) など、親血管の血流を温存した
21 reconstructive treatment が試みられている¹⁻⁹⁾。

22 なかでも、経時的に増大する growing BADA は非常に稀で、出血例や
23 mass effect による進行性悪化例では積極的治療が勧められるものの、治
24 療方法は未確立である^{1,3)}。2015 年のレビュー³⁾では、文献上 15 例の報告

1 があり、うち破裂例は6例であった。14例(93%)では初期治療に保存的加療
2 が選択されたが、のちに追加治療(直達手術3例、血管内治療7例)を行っ
3 たものは予後良好例が多い一方で、保存的加療のみを行った6例中5例が
4 死亡していた。2003年以降は血管内治療が主で、椎骨動脈を閉塞した1
5 例を除く全例で何らかのstentが用いられ、うちSACが4例と最も多く3.7)、
6 他はstent-only therapy 1例¹⁾、FD 1例⁴⁾だった。BAが経時的に全周
7 性に増大した5例は、全例で保存的に加療され、うち4例が死亡していた。
8 一方で、今回のように、経時的な増大部が、広基性であっても一方向のみに
9 囊状に拡張した10例では、9例で積極的治療が行われ、増大部を破裂点
10 としたclippingやcoil留置も試みられ、死亡は保存的加療例を含む2例
11 のみだった。

12 今回の症例では、出血発症のgrowing BADAに対し、コイル塞栓術を
13 併用したoverlapping stent therapyを行い、2年以上の良好な長期予後
14 を得た。一般にBADAのコイル塞栓では、仮性瘤には真の瘤壁がなく極めて
15 脆弱なため術中破裂のリスクが高い^{2,7)}。また、不整な形態や分枝の存在の
16 ため不完全閉塞となりやすく⁵⁾、仮性瘤のみのコイル塞栓では早期に再開通
17 する可能性がある²⁾。SACは、コイルによる速やかな止血効果とともに、血管
18 走行変化によるhemodynamic stressの軽減や、stent strutに沿った新
19 生内膜形成による内皮修復効果を期待する方法である⁵⁾。金属被覆率は
20 Enterprise VRDが10%、FDは30~35%程度であり⁹⁾、neck bridge
21 stentの整流効果は限定的とされるが⁴⁾、破裂急性期のBADAに対し複数
22 のステントを重ねて留置し、porosityの減少とステント厚の増加を期待した報
23 告が散見される^{5,10)}。今回の症例では、ステントを留置するごとに増大部の
24 造影効果は減少し、コイルを1本留置した時点で増大部の造影効果は消

1 失した。術中破裂リスク低減のため、今回は、やや小径のコイルによる疎な塞
2 栓を行ったが、コイルの安定性が得られるのであれば、ステント留置前にカテー
3 テルの可動性があるうちにコイルを挿入することも考慮してよいと思われる。また、
4 BA 本幹の紡錘状血管拡張部については、ステント外に造影効果が残存し
5 たもののコイル追加は控えたが、8 か月後の DSA では壁不整は消失し血管
6 径も正常化する一方、同部からの分枝は温存されていた。ステントを重ねて
7 留置することで、密なコイル塞栓を避けることができ、ひいては術中破裂や分
8 岐閉塞などのリスクを減少させ得る可能性も考えられた。

9 Neck bridge stent の選択であるが、血管直線化には closed-cell type
10 が有利であり、open-cell type は解離性動脈瘤の壁に strut の端が当たる
11 ことも危惧された。2 枚目のステント留置のためマイクロカテーテルを再挿入す
12 る際に、留置済みのステントのデリバリーワイヤーではなく別のマイクロワイヤー
13 を使用する場合も、strut との干渉を避ける上で closed cell type が望まし
14 いと思われた。これまでの BADA に対する SAC および stent-only therapy
15 の報告では、open cell type、closed cell type とともに種々のステントが使用
16 されている^{5,6,9)}。ステント長については、解離性病変の正確な広がりを決
17 するのは困難であるため、解離部近位の inflow を確実に押さえるには長いス
18 テントによる multiple-overlapping stents は有利と思われる⁶⁾。今回も、
19 病変近位部に推定される inflow を押さえるため、1 本目のステントは近位正
20 常血管と思われる左 VA まで留置した。しかしながら、ステント遠位端が予定よ
21 り近位へずれて後大脳動脈の屈曲に沿わなかったため、2 本目のステントは、
22 BA 近位部から後大脳動脈まで十分かかるよう、1 本目と同サイズのステントを
23 選択した。一方で、2 本目のステントは可能であれば短いものを選択したほうが
24 穿通枝や分枝への影響を減らせるかもしれない。ステント径は、解離腔を閉

1 塞するため **radial force** の強い大径のステントを勧める意見がある⁶⁾。
2 コイル留置を行わない **stent-only therapy** でも、**neck bridge stent** を
3 2～3枚重ねた **multiple-overlapping stents** の報告が多く^{2,8,9)}、閉塞
4 率は **single stent** 群より有意に良好とされる⁸⁾。しかしながら、**stent-only**
5 **therapy** や **FD** は速やかな止血効果に乏しく、特に破裂例など可能ならコイ
6 ル塞栓併用が望ましい^{2,5,6)}。病変閉塞に要する時間も不明で²⁾、閉塞効
7 果も瘤・親血管の形態などに依存し予測困難であり、無効率 **36%**との報告
8 もある⁶⁾。**FD** については、急性期・亜急性期の破裂 **BADA** の症例報告では
9 良好な成績がみられるものの²⁾、後方循環系脳動脈瘤に対するメタアナリシ
10 スでは破裂瘤・脳底動脈瘤で成績が悪い¹¹⁾。また、本邦では破裂急性期お
11 よび後方循環系に対しては現時点では保険未承認である。

12 **BADA** に対する **reconstructive therapy** の周術期には抗血小板剤 **2**
13 剤を含む抗血栓療法が必須である。破裂急性期では再破裂・水頭症治療
14 などが特に問題となるが^{4,8)}、抗血小板剤の **loading** の時期は術前・術中・
15 術後いずれの報告もあり定見はない^{2,4)}。報告では抗血小板剤の投与開始
16 時期は術直前が多く、これは再出血を危惧しての選択と考えられる。しかしな
17 がら、複数のステントを留置する可能性がある症例では、術後の虚血性合併
18 症を避けるために十分な抗血小板療法が重要であり、我々の症例では亜急
19 性期まで待機したことからも、治療の数日前から内服を開始していた方が安
20 全だったかもしれない。また、穿通枝・分枝閉塞に伴う虚血性合併症や、慢
21 性期には内膜過形成による内腔狭窄等に注意を要する^{6,9)}。治療効果判
22 定のための血管撮影は、少なくとも治療 **1** 週間後と治療 **6** か月後に行うこと
23 が勧められ、治療 **6** か月後で抗血小板剤単剤への減量を考慮するが²⁾、細
24 径の脳底動脈に複数のステントを留置した場合など、減量には慎重な判断

1 を要する。

2 なお、本稿での **Enterprise VRD** の使用法は本邦では保険適応外であ
3 り、他に有効な手段がなく緊急避難であることについて十分な **informed**
4 **consent** を得たうえで治療を行った。

5 今回の症例ではコイル塞栓併用による **overlapping stent therapy** で
6 良好な予後を得られたが、ステントによる血管直線化は症例ごとに異なると思
7 われ、また **BADA** も形態、分岐、側副路、発症様式、治療時期など
8 **heterogeneous** な疾患といえ、症例ごとに最適な治療方針を検討すべきで
9 ある。

10

11

結語

12 **Growing BADA** に対し、親血管の血流を温存した **overlapping stent**
13 **therapy** は治療の **option** となりうる。長期予後は未だ不明で慎重な経過観
14 察を要する。

15

16

利益相反の開示

17 筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

18

文献

1
2
3
4
5
6
7
8
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22
23
24

1. Jamous MA, Satoh K, Matsubara S, et al: Ischemic basilar artery dissecting aneurysm treated by stenting only—case report-. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 2004;44: 77-81.
2. Derelle AL, Barbier C, Tonnelet R, et al: Three Cases of Ruptured Basilar Artery Dissection: From Diagnosis to Endovascular Treatment. *World Neurosurg* 2016;91: 676.
3. Fu C, Zhao C, Zhao H, et al: Growing Dissecting Aneurysm of Basilar Trunk Treated with Stent-assisted Coiling. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 2015;24: e5-9.
4. 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: 1713-6.
5. Suh SH, Kim BM, Park SI, et al: Stent-assisted coil embolization followed by a stent-within-a-stent technique for ruptured dissecting aneurysms of the intracranial vertebrobasilar artery. Clinical article. *J Neurosurg* 2009;111: 48-52.
6. 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: 50-5.
7. Nagashima H, Hongo K, Matsumoto Y, et al: Clinical results

- 1 and pathological findings of stent-assisted coil embolization
2 for basilar artery trunk dissecting aneurysms. *Interv*
3 *Neuroradiol* 2003;9(Suppl 1): 95-9.
- 4 8. Park SI, Kim BM, Kim DI, et al: Clinical and angiographic
5 follow-up of stent-only therapy for acute intracranial
6 vertebrobasilar dissecting aneurysms. *AJNR Am J*
7 *Neuroradiol* 2009;30: 1351-6.
- 8 9. Zhang X, Li W, Lv N, et al: Endovascular management of
9 ruptured basilar artery dissection with two overlapping
10 Low-profile Visualized Intraluminal Support stents. *Interv*
11 *Neuroradiol* 2016;22: 659-661.
- 12 10. Jeon P, Kim BM, Kim DI, et al: Reconstructive endovascular
13 treatment of fusiform or ultrawide-neck circumferential
14 aneurysms with multiple overlapping enterprise stents and
15 coiling. *AJNR Am J Neuroradiol* 2012;33: 965-71.
- 16 11. Wang CB, Shi WW, Zhang GX, et al: Flow diverter treatment
17 of posterior circulation aneurysms. A meta-analysis.
18 *Neuroradiology* 2016;58:391-400.
- 19

1 図表の説明

2 **Figure 1**

3 **A:** CT on admission showing diffuse subarachnoid hemorrhage.

4 **B:** 3D-CTA on admission showing a basilar artery fusiform
5 aneurysm.

6

7 **Figure 2**

8 Follow up images.

9 **A:** DSA on day 2 (A) and MRA on day 9 (B) showing a basilar
10 artery fusiform aneurysm.

11 **C:** MRA on day 16 showing a pseudoaneurysm on the right wall of
12 the basilar artery (arrow).

13

14 **Figure 3**

15 Intraoperative images. Arrows indicate the margin of the first
16 stent (white arrow: proximal marker, black arrow: distal marker),
17 and arrowheads indicate the margin of the second stent (white
18 arrowhead: proximal marker, black arrowhead: distal marker).

19 **A-B:** Preoperative DSA (A) and 3D-RA (B) showing a basilar
20 trunk fusiform aneurysm, from which a pseudoaneurysm,
21 bilateral anterior inferior cerebellar arteries and large
22 perforating branches arose.

23 **C:** Cone-beam CT image showing two neck bridge stents deployed
24 in the basilar artery by telescoping technique and a

1 microcatheter placed into the pseudoaneurysm by jailing
2 technique.

3 **D:** DSA after stent placement. The blood flow into the
4 pseudoaneurysm decreased markedly.

5 **E:** Final angiogram showed complete obliteration of the
6 pseudoaneurysm. The fusiform aneurysm was depicted through
7 the overlapped stents.

8 **F:** Follow up DSA at 8 months after the endovascular treatment
9 showed no recurrence of the aneurysm. The irregular shape of
10 the basilar artery trunk was remodeled with preservation of the
11 branches.

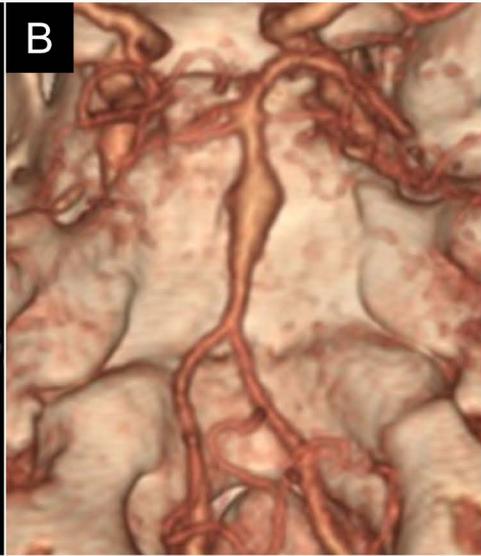
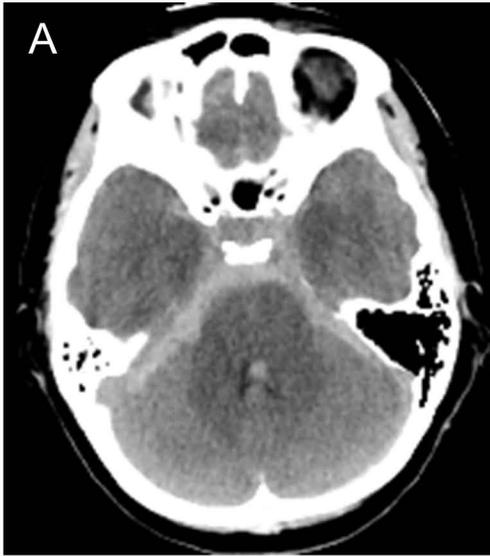


Figure 1

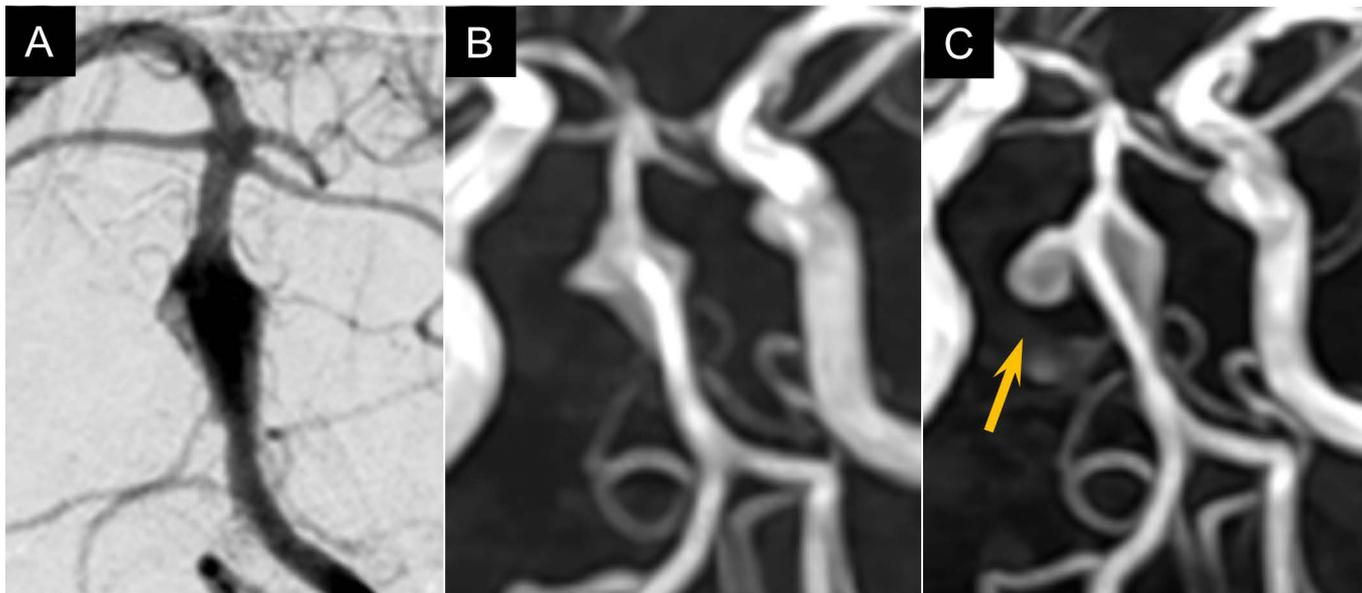


Figure 2

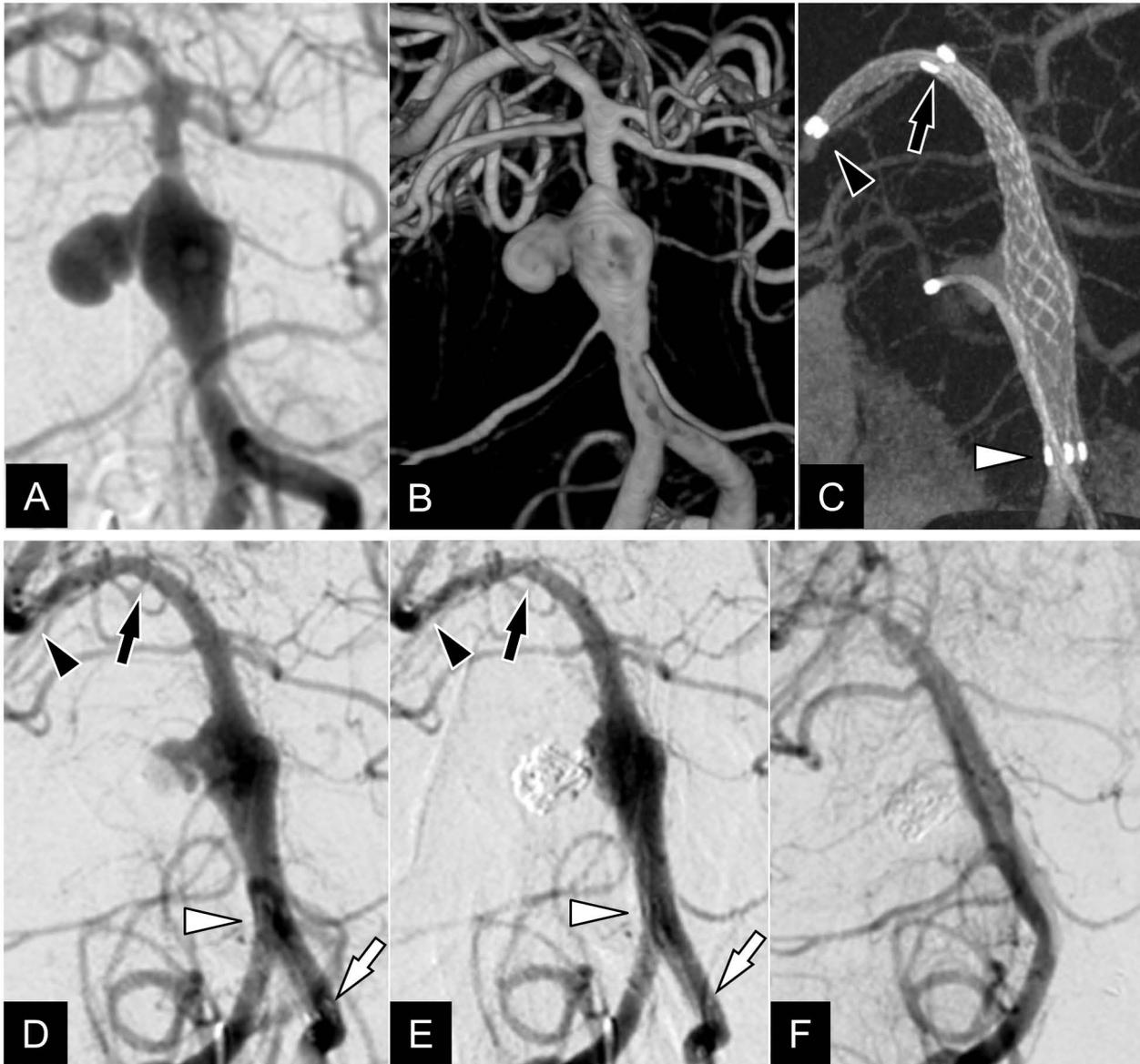


Figure 3