

- 1 <論文種別> 症例報告
- 2 <論文タイトル>
- 3 茎状突起過長症に伴い頸部内頸動脈に大型の解離性動脈瘤を生じた 1 例
- 4 <著者>
- 5 東 英司，波多野武人，坂 真人，安藤充重，千原英夫，橋川拓郎，瀧田 亘，
- 6 徳永敬介，舟越勇介，鎌田貴彦，永田 泉
- 7 <所属>
- 8 小倉記念病院脳卒中センター脳神経外科
- 9 <連絡先>
- 10 東 英司 小倉記念病院脳卒中センター脳神経外科
- 11 福岡県北九州市小倉北区浅野 3-2-1
- 12 TEL: 093-511-2000 E-mail : eiji0016788@gmail.com

13 < keyword > Eagle syndrome, aneurysm, covered stent

14 < 宣言 >

15 本論文を，日本脳神経血管内治療学会機関誌 JNET Journal of

16 Neuroendovascular Therapy に投稿するにあたり，筆頭著者，共著者に

17 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

18 す．

1 和文要旨

2 目的

3 茎状突起過長症により内頸動脈に大型の解離性動脈瘤を来した稀な

4 症例を経験したので報告する．

5 症例

6 45歳女性，2年前より咽頭部違和感があり，3ヵ月前より左頸部腫

7 脹，咽頭痛や嚥下困難が出現した．頸部 CTA で左頭蓋外内頸動脈に

8 27mm の動脈瘤を認めた．瘤を圧排するように延長した茎状突起を

9 認め，それによる解離性動脈瘤が疑われた．瘤内の血栓化を目的と

10 してカバードステントを留置したところ，その後に症状は軽快し，

11 画像でも動脈瘤の血栓化と縮小を認めた．

12 結論

13 茎状突起過長症に大型動脈瘤を合併し治療を行った報告は非常に稀

14 であり，直達手術困難例ではカバードステントが治療戦略の1つと

15 なりうると考えられる．

16

17 緒言

18 茎状突起過長症は延長した茎状突起により咽頭部や周囲の神経，
19 血管などを圧排し様々な症候を呈する症候群である．延長した茎状
20 突起により近接する内頸動脈に解離をきたした症例は散見されるよ
21 うになっているが，解離性動脈瘤を来たしたとするものは少なく，
22 その動脈瘤に対して治療を行ったとする報告は非常に稀である．今
23 回，茎状突起過長症に伴い頸部内頸動脈に大型の解離性動脈瘤を生
24 じたと考えられ治療を行った症例を経験したので報告する．

25

26 症例呈示

27 症例：45歳女性

28 主訴：左頸部腫脹，咽頭痛，嚥下時痛，左耳閉塞感

- 29 既往歴：高血圧，口蓋扁桃摘出術歴や頭頸部外傷歴なし
- 30 生活歴：喫煙あり（10本/日を20年），飲酒あり（ビール2L/日）
- 31 家族歴：特記事項なし
- 32 現病歴：2年前より咽頭部の違和感や左耳閉塞感があり，頸部回旋
- 33 時に時折頸部痛を自覚していたが，近医耳鼻科では原因不明であっ
- 34 た．3ヵ月前より左頸部の腫脹を認め，徐々に咽頭痛・嚥下困難が
- 35 出現したため受診となった．
- 36 来院時所見：左顎下は腫脹しており，同部は自発痛と頸部回旋によ
- 37 る疼痛の増強を認めた．嚥下時痛を認めたが嚥下は可能であり，そ
- 38 の他に神経学的な異常所見は認めなかった．
- 39 耳鼻咽喉科内視鏡所見：咽頭腔は左側で狭小であった(Fig.1).
- 40 頭頸部CTA：第1頸椎の高位から頭蓋底近位に左頭蓋外内頸動脈に

41 最大径 27mm の嚢状動脈瘤を認めた．動脈瘤より遠位は対側に比べ
42 描出が乏しく血流の低下が疑われた．動脈瘤を圧排するように
43 42mm に延長した茎状突起を認めた(Fig.2)．対側の茎状突起も
44 40mm と延長していたが，内頸動脈とは接していなかった．
45 頭頸部 MRI：脳実質には信号変化を認めなかった．動脈瘤は同側咽
46 頭腔を対側に圧排しており，動脈瘤内は T1 及び T2 強調画像で低信
47 号であり明らかな血栓化は認めなかった(Fig.3-a)．
48 血管造影 / Balloon occlusion test (BOT)：左内頸動脈頸部には最大
49 径 27.7mm の動脈瘤を認め，瘤より遠位は遅延して造影された
50 (Fig.4-a)．左総頸動脈と外頸動脈を遮断して BOT を行ったところ，
51 症状の出現は無かったが BOT 時の single photon emission
52 computed tomography(^{99m}Tc-HMPAO)では左中大脳動脈領域に対

53 側比で 80%程度の低下を認めた．

54

55 治療方針

56 本症例では動脈瘤に接して延長した茎状突起を認めることから，

57 茎状突起過長症による解離性動脈瘤と判断した．動脈瘤は周囲組織

58 を圧排することにより症候を呈しており，増大時もしくは破裂時に

59 は気道閉塞など致死的となる危険性があったため外科的治療の適応

60 と判断した．動脈瘤の大きさや位置からは頸部切開では動脈瘤遠位

61 端の確保が困難と考えられ，血管内治療を選択した．まず母血管閉

62 塞を考え，BOTの結果からはバイパス併用が望ましいと考えられた

63 が，患者は開頭手術を希望しなかった．また，動脈瘤内コイル塞栓

64 では mass effect が残存してしまい症状の改善が得られない可能性

65 があり，ステント留置による瘤内の血栓化を企図した．動脈瘤の開
66 口部は非常に広く，ベアーメタルステントでの整流効果が期待でき
67 ないと思われ，カバードステントを使用することとした．本邦では
68 頸動脈への使用は認可されていないため，院内倫理委員会で承認を
69 得て，患者本人に同意を得た．動脈瘤の原因となった茎状突起の摘
70 出の適応もあると考えられたが，まずは今回の症状の原因と考えら
71 れた動脈瘤治療を優先して行い，症状の改善が得られなければ追加
72 する方針とした．

73

74 血管内治療

75 1週間前よりアスピリン 100mg とクリピドグレル 75mg の内服を
76 開始し，全身麻酔下で治療を施行した．右大腿動脈経由で 8F Shuttle

77 Guiding Sheath(Cook Medical, Bloomington, IN, USA)を左内頸動
78 脈の動脈瘤近位に留置した． 4F セルリアンカテーテル(メディキッ
79 ト， 東京)を中間カテーテルとして用い， Excelsior SL-10(Stryker,
80 Kalamazoo, MI, USA)を動脈瘤の遠位へ誘導しようとした． しかし，
81 直接の選択は困難であり， 動脈瘤内で一回転させることで誘導可能
82 であった． 瘤内で回した SL-10 を直線化できなかったため， セルリ
83 アンを追随させ動脈瘤遠位まで誘導後にセルリアンを介して SL-10
84 を Carotid GuardWire(GW; Medtronic, Minneapolis, MN, USA)に
85 交換した． 遠位内頸動脈で GW を拡張させアンカリングさせた状態
86 で直線化し，セルリアンを介して GW を 400cm の 0.035inch ワイヤ
87 ーへ交換した． 動脈瘤は最大径 27.7mm， ネック 12.8mm であり，
88 動脈瘤周辺の正常血管径は近位部で 5.0mm， 遠位部で 4.1mm であ

89 った．カバードステントは展開後にエンドリークが問題となること
90 があるため，密着性を高めるよう通常の頸動脈ステントに比べ over
91 size 径で、また病変の遠位の錐体部の屈曲にはかからないような長
92 さの Niti-S ComVi stent 8mm×6cm(センチュリーメディカル社，
93 東京)を選択し、左内頸動脈に展開した．展開が不十分な部分を後拡
94 張し，血管に圧着させた．最終の血管造影では動脈瘤内への血流は
95 消失し，動脈瘤遠位の造影の遅延は改善された(Fig.4-b)．

96

97 術後経過

98 術直後よりアルガトロバンの持続投与を行った．術後に神経学的
99 脱落所見は認めなかったが，術後1日目には頸部痛の増悪と咽頭の
100 灼熱感が出現した．頭頸部MRIではT1及びT2強調画像で瘤内の

101 信号増強を認めており(Fig.3-b), 血栓化に伴う炎症の周囲への波及,
102 特に舌咽神経の症状が疑われた. プレドニゾロンを 1mg/kg より内
103 服を開始したところ, 徐々に症状は緩和された. プレドニゾロンを
104 漸減し, プレガバリンや NSAIDS を併用して術後 2 週間で自宅退院
105 となった. その後は症状の増悪なく経過し, 術後 3 ヶ月の血管造影
106 では瘤の描出はなく, ステント内狭窄なども認めなかった. また,
107 術後 4 ヶ月の MRI では動脈瘤の縮小を認めた(Fig.3-c).

108

109 考 察

110 茎状突起過長症は 1937 年に Eagle が最初に報告したことで Eagle
111 症候群とも呼ばれ, 延長した茎状突起もしくは茎突舌骨靱帯の骨化
112 などにより頸部痛, 咽頭症状, 耳症状など様々な症状を呈する疾患

113 である¹⁾。茎状突起の正常平均長は 2.5～3.0cm であり²⁾、過去報告
114 では 3.0cm 以上を過長症としているものが多く、4.0cm 以上で疼痛
115 と高率に相関するとされる³⁾。Eagle らは茎状突起過長を認める患
116 者のうち、症状を呈したものは 4%に過ぎないと報告しており⁴⁾、日
117 常診療で遭遇することは比較的稀である。典型的にそれらの症状に
118 は延長した茎状突起自体による咽頭・頸部などへの物理的刺激によ
119 る疼痛や嚥下困難などの症状、舌咽神経などの下位脳神経や頸動脈
120 周囲の交感神経の神経刺激による神経症状、頸部血管への直接物理
121 的圧迫による血流低下での失神や一過性脳虚血発作、脳梗塞などが
122 含まれる。また近年では頸部血管への物理的圧迫に伴う頸動脈解離
123 の報告も散見される⁵⁾⁶⁾。
124 症候性である頻度が低く、またその症状は多様であることから、

125 診断に困難な例が多く，本症例においても初発症状から診断には約
126 2年を要した．頸部超音波検査やMRI，血管造影検査では骨評価が
127 できないためその診断は困難であり，茎状突起と頸動脈などの周囲
128 組織の評価が可能なCTAが有用とされ，本症例でもそれにより初め
129 て診断が可能であった．また，健常人と比較して頸動脈解離の罹患
130 者では，茎状突起の過長を有し，茎状突起と頸動脈がより近接して
131 いることが報告されており⁷⁾⁸⁾，茎状突起過長症と頸動脈解離の関
132 連性が示されている．

133 一方，頭蓋外内頸動脈瘤は頭蓋内外の全ての動脈瘤のうち1%以
134 下とされる非常に稀な疾患であり⁹⁾，症候を呈するまで発見されな
135 いものが多数である．破裂を来すことは稀であるが，嗄声，呼吸困
136 難などの局所圧迫症状や血栓塞栓による脳虚血症状で発症すること

137 が多い．その病因は多岐にわたり，外傷性，頸動脈術後，解離性，
138 頸部放射線療法後，アテローム性などが原因となりうるとされてい
139 る¹⁰⁾．Ogura は Eagle 症候群に伴う解離性動脈瘤を来たしたとす
140 る 1 例を報告しているが¹¹⁾，大型の動脈瘤に伴い症候を呈し外科的
141 治療を施行したものは非常に稀であった．
142 一般的に茎状突起過長症に対する治療法は，鎮痛剤や抗痙攣薬，
143 降圧薬，局所麻酔薬などの併用による保存的治療と口内もしくは頸
144 部切開による茎状突起摘出術の外科的治療が有効であるとされてい
145 る²⁾．また，茎状突起過長症に伴う頸動脈解離に対する治療法は確
146 立しておらず，まずは抗血栓療法など内科的治療が優先されるが，
147 高度の狭窄により虚血症状を繰り返す例ではステント留置術が施行
148 されている⁵⁾¹¹⁾．ステント留置後も茎状突起による血管やステント

149 の圧迫が残存する場合は解離の再発やステント内血栓症などのリス
150 クになりうると考えられ、茎状突起摘出術も考慮する必要がある⁵⁾。
151 一方、頭蓋外頸部動脈瘤に対する治療は、以前より動脈瘤切除・縫
152 縮術やそれが困難な例などでは内頸動脈結紮術と側副血行に応じて
153 頸部局所もしくは頭蓋内のバイパス術の併用が選択される傾向があ
154 った。しかし、術中操作による脳神経障害の危険性や頭蓋底に近い
155 動脈瘤では難易度が高く非常に広い切開を要するなどその侵襲性の
156 高さから、近年ではステント留置やコイル塞栓による血管内治療の
157 報告が見られるようになった¹²⁾¹³⁾。中でも本症例のような大型動脈
158 瘤に対しての瘤内コイル塞栓はそれ自体が **mass effect** を呈するこ
159 とが懸念されるため、ステント単独での整流効果を期待した治療が
160 望ましいと思われる。Z Li らの **systematic review** では、頭蓋外頸

161 動脈瘤に対するステント留置術の成功率は 92.8%と良好な成績が
162 示され，さらにカバードステントは術後の瘤内塞栓化率や遅発性合
163 併症率，再治療率などにおいてベアーメタルステントと比較して短
164 期的予後が優れていることも報告されている¹⁰⁾．先述したように茎
165 状突起過長症に伴う大型内頸動脈瘤の報告は少なくその治療方針は
166 定まっていないため，我々はまず症状の原因と思われる動脈瘤の治
167 療を侵襲性の低い血管内治療で行う方針とした．本邦保険診療で頭
168 頸部に使用可能なカバードステントは現時点ではないため，その適
169 応は慎重でなければならない．本症例では動脈瘤の開口部が非常に
170 広く，通常のベアーメタルステントでは整流効果が期待できないと
171 判断し止む無くカバードステントを選択した．本邦で使用可能なカ
172 バードステントは胆管もしくは冠動脈用ステントであり，ステント

173 長および径，デリバリーカテーテルの有効長，被覆素材などから適
174 切なものを選択する必要がある．本症例では広い瘤開口部を確実に
175 カバーする長さや内頸動脈の太い血管径から胆管用ステントを選択
176 した．大腿動脈経路であるためデリバリーカテーテルの有効長が通
177 常の頸動脈ステントと同程度以上に長く，人工血管に広く使用され
178 る expanded polytetrafluoroethylene (ePTFE)を被覆素材とした
179 Niti-S ComVi ステントを選択した．本治療の注意点としては，8～
180 9F 以上の比較的大径のガイディングカテーテルを要すること，デリ
181 バリーカテーテルが固く高齢者など蛇行した血管では頸動脈への誘
182 導に難渋すること，デリバリーカテーテルの有効長が頸動脈治療に
183 適当ではなく操作性に乏しいことなどがあげられる．また，被覆率
184 の高さからはステント内血栓症などが想定されるため，術前より抗

185 血栓療法を十分に効かせておく必要がある．現在のところカバード
186 ステント留置に対する抗血栓療法の十分な指針は無いが，ベアメタ
187 ルステントと同様に抗血小板薬の多剤併用が多く用いられているよ
188 うである¹²⁾．また，ステントの耐用性などの長期的予後は明確では
189 なく，さらに過長した茎状突起の圧排により後に頸動脈ステントに
190 fractureを生じるとする報告もあり¹⁴⁾，血管造影などでの慎重な評
191 価の継続が必要と考えられる．

192 結語

193 茎状突起過長症に伴い大型の解離性動脈瘤を生じた非常に稀な 1
194 例であり，カバードステント留置により瘤の血栓化と症状の改善が
195 得られた．現時点で長期的な予後は明らかではないが，茎状突起過
196 長症に伴う大型の解離性動脈瘤においても直達手術が困難な例では

197 治療戦略の一つとなりうると考えられた。

198

199 利益相反の開示

200 筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

201 文献

202 1. W.W. Eagle. Elongated styloid processes: report of two cases.

203 Arch Otolaryngol Head Neck Surg 1937; 25: 584-587.

204 2. Arvind Badheya, Ameya Jategaonkara, Alexander Joseph

205 Anglin Kovacs, et al. Eagle syndrome: a comprehensive

206 review. Clin Neurol Neurosurg 2017; 159: 34-38.

207 3. P.A. Monsour, W.G. Young. Variability of the styloid process

208 and stylohyoid ligament in panoramic radiographs. Oral Surg

209 Oral Med Oral Pathol 1986; 61: 522-526.

210 4. W.W. Eagle. Elongated styloid process; symptoms and
211 treatment. AMA Arch Otolaryngol 1958; 67: 172-176.

212 5. Miyata H, Nakahara I, Ohta T, et al. A case of internal carotid
213 artery dissection caused by an elongated styloid process:
214 successful treatment with carotid artery stenting and partial
215 resection of the styloid process. Surg Cereb Stroke(Jpn) 2016;
216 44: 145-150.

217 6. Zuber M, Meder JF, Mas JL. Carotid artery dissection due to
218 elongated styloid process. Neurology 1999; 53: 1886-1887.

219 7. Raser JM, Mullen MT, Kasner SE, et al. Cervical carotid
220 artery dissection is associated with styloid process length.

221 Neurology 2011; 77: 2061-2066.

222 8. Renard D, Azakri S, Arquizan C, et al. Styloid and hyoid bone

223 proximity is a risk factor for cervical carotid artery dissection.

224 Stroke 2013; 44: 2475-2479.

225 9. Miksic K, Flis V, Kosir G, et al. Surgical aspects of fusiform

226 and saccular extracranial carotid artery aneurysms.

227 Cardiovasc Surg 1997; 5: 190-195.

228 10. Z. Li, G. Changa, C. Yaoa, et al. Endovascular stenting of

229 extracranial carotid artery aneurysm: a systematic review.

230 Eur J Vasc Endovasc Surg 2011; 42: 419-426.

231 11. Ogura T, Mineharu Y, Todo K, et al. Carotid Artery

232 Dissection Caused by an Elongated Styloid Process: Three

233 Case Reports and Review of the Literature. NMC Case Report
234 Journal 2015; 1: 21-25.

235 12. Seward CJ, Dumont TM, Levy EI. Endovascular therapy of
236 extracranial carotid artery pseudoaneurysms: case series and
237 literature review. J Neurointerv Surg 2015; 7: 682-689.

238 13. Leng Ni, Zuo Pu, Rong Zeng, et al. Endovascular stenting
239 for extracranial carotid artery aneurysms: experiences and
240 mid-term results. Medicine (Baltimore) 2016; 95: e5442.

241 14. Hooker JD, Joyner DA, Farley EP, et al. Carotid Stent
242 Fracture from Stylocarotid Syndrome. J Radiol Case Rep 2016;
243 10: 1-8.

244

245 図表の説明

246 Fig.1 耳鼻咽喉科内視鏡

247 左咽頭腔は対側と比較して狭小であった.

248

249 Fig.2 頭頸部 CTA

250 42mm に延長した左茎状突起に接して最大径 27mm の頭蓋外内頸動

251 脈瘤を認めた(a, b, d). 動脈瘤遠位は描出が乏しく、灌流の低下が

252 疑われる(c).

253

254 Fig.3 MRI T1WI

255 術前には動脈瘤に明らかな血栓化を認めない(a). ステント留置術後

256 1日目には既に瘤内の信号は上昇し血栓化の傾向を認めた(b). 術後

257 4ヵ月には瘤の縮小を認めた(c).

258

259 Fig.4 カバードステント留置

260 頭蓋外左内頸動脈に大型動脈瘤を認め、動脈瘤遠位の造影は遅延し

261 ていた(a). 術後の造影では瘤内への血流は消失し、動脈瘤遠位の造

262 影遅延も改善された(b).

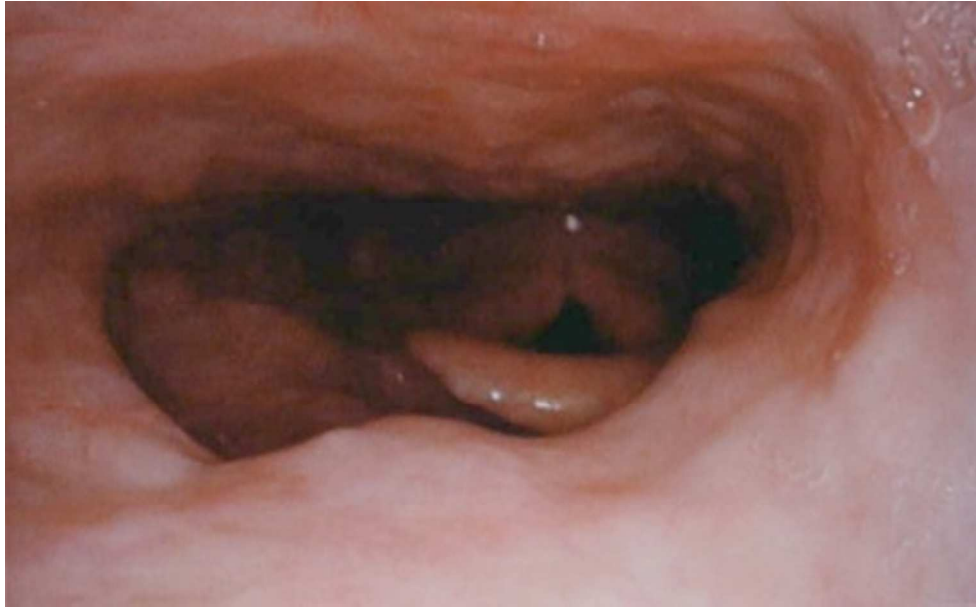


Fig.1

128x79mm (96 x 96 DPI)

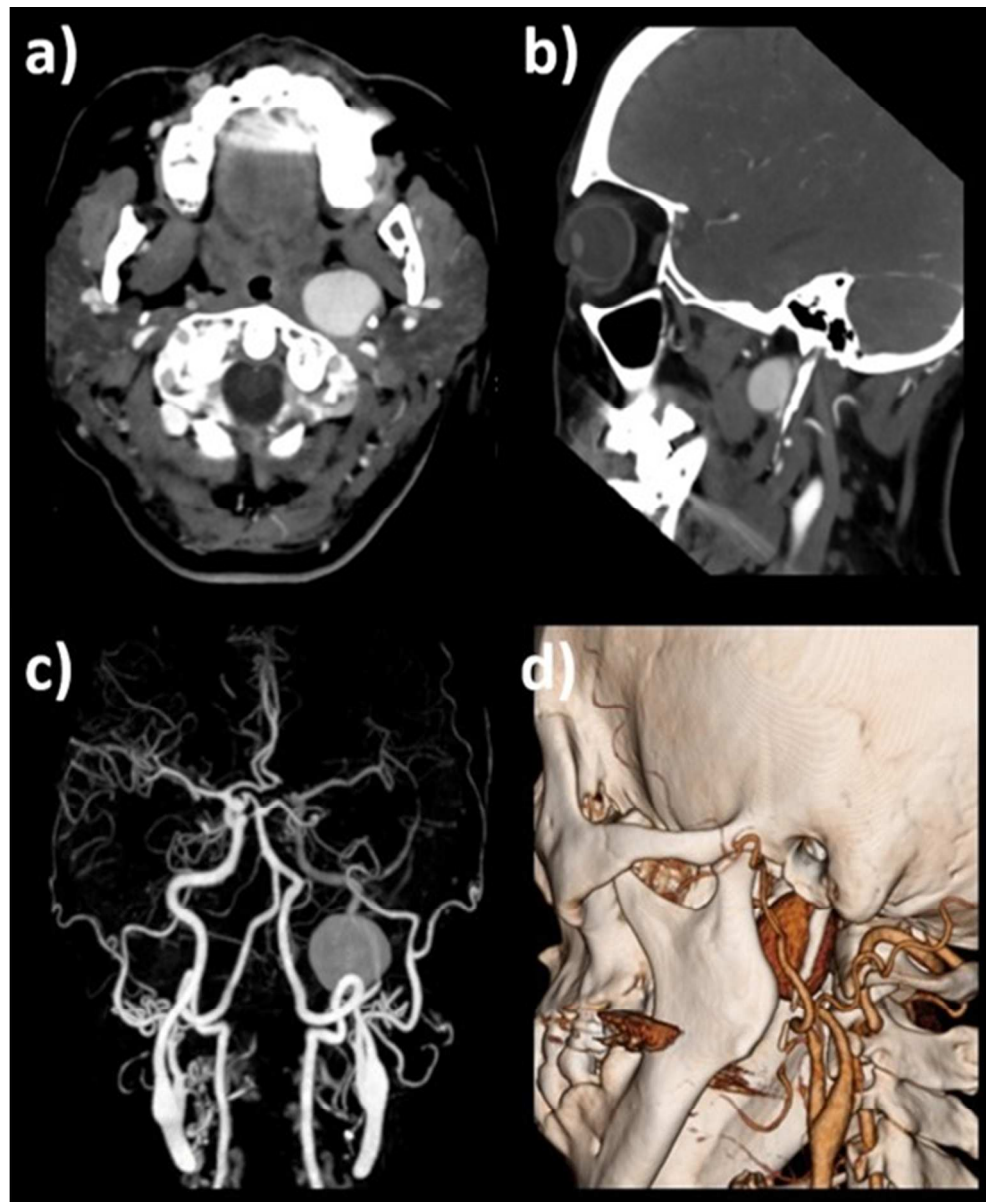


Fig.2

150x183mm (96 x 96 DPI)

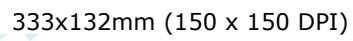




Fig.4

248x188mm (96 x 96 DPI)