

1) 症例報告

2) LVIS stent 2本留置にて治療した破裂内頸動脈血豆状動脈瘤の  
1例

3) 鈴木亮太郎、滝川知司、穴澤徹、白坂暢朗、松本佳之、  
藤井淑子、成合康彦、杉浦嘉樹、河村洋介、高野一成、  
田中喜展、永石雅也、兵頭明夫、鈴木謙介

4) 獨協医科大学埼玉医療センター 脳神経外科

5) 鈴木亮太郎、獨協医科大学埼玉医療センター 脳神経外科  
埼玉県越谷市南越谷 2-1-50, 048-965-1111、  
ryo096943@gmail.com

6) subarachnoid hemorrhage

ruptured aneurysm

blood blister-like aneurysm

Multiple overlapping stent

Low-profile Visualized Intraluminal Support stents

7) 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」破裂内頸動脈血豆状動脈瘤に対してコイル塞栓を併用せず LVIS (Low-profile Visualized Intraluminal Support) stent 留置のみで治療を施行した 1 例を報告する。

「症例」48 歳女性、突然の頭痛にて発症、**Hunt and Kosnik grade 1** のくも膜下の診断。血管造影検査で左内頸動脈に 2mm 大の血豆状動脈瘤を認めた。小型瘤であり瘤内へのコイルの留置は困難と判断し 2 枚重ねて LVIS stent を留置した。再出血なく経過し、術後 1 年の時点で動脈瘤の再発はなく経過良好である。

「結論」破裂内頸動脈血豆状動脈瘤は治療が難しい動脈瘤であるが、コイルの使用が困難である症例においては、ステント複数留置のみの治療は有用な治療方法の一つであると考えられる。

## 「緒言」

血豆状動脈瘤 (BBA: blood blister-like aneurysm) は全破裂動脈瘤のうち 0.5 - 2% とされており、特に高い死亡率が報告されている<sup>1)</sup>。BBA は分岐のない部位に生じる小型の動脈瘤で、中大脳動脈、前交通動脈など様々な場所に発生するが、最も多いのは内頸動脈 (ICA: internal carotid artery) supraclinoid portion である<sup>2, 3)</sup>。BBA は通常の嚢状動脈瘤とは異なり、一般的に半球状、ワイドネック、親動脈からの分岐ではっきりとしたネックが同定できない、短期間での形状変化、脆弱で再出血や再増大の傾向が強いことが報告されている<sup>4)</sup>。

BBA は早期での再出血が多く、再出血を避ける為可能なかぎり

早期に治療することが望ましいが<sup>5)</sup>、現在治療方法に関してのコンセンサスは得られていない。治療方法として direct clipping, suturing, clipping after wrapping, encircling clip などの開頭術, endovascular or surgical trapping with/without bypass, coil embolization, stenting or flow-diverting stent, multiple overlapping stent などの血管内治療などが報告されているも、どの治療が適切な治療かはコンセンサスが得られていない<sup>6)</sup>。

我々は破裂内頸動脈 BBA に対してコイルを併用せず LVIS ( Low-profile Visualized Intraluminal Support ) stent ( Microvention-Terumo, Tustin, CA, USA ) を 2 本用いて治療を施行した 1 例を報告する。

#### 「症例提示」

症例は 48 歳女性、突然の頭痛で発症し当院へ救急搬送となった。既往歴は特記事項なし。頭部 CT では出血ははっきりせず、頭部 MRI FLAIR 画像で左シルビウス裂にくも膜下出血 subarachnoid hemorrhage ( SAH ) を認めた ( Fig. 1A )。意識清明で頭痛以外に症状はなく、神経学的異常所見は認めず、Hunt and Kosnik grade 1、World Federation of Neurosurgical Societies ( WFNS ) grade 1 の SAH と診断した。MRA では出血源ははっきりせず血管造影検査を施行。血管造影検査で ICA supraclinoid portion に最大径 2.4mm の膨隆を認めた ( Fig. 1B )。他に動脈瘤は認めなかったため、同部位からの破裂と考えられたが、Hunt and Kosnik grade 1 と軽症の SAH であり、開頭での ICA トラッピ

ング、ハイフローバイパス併用での治療は治療リスクが高い判断、また血管内治療としてICAトラッピングは側副血行路の評価ができないため脳梗塞のリスクが高く、小型の動脈瘤のためコイル塞栓術は不可と判断、いずれの急性期治療もリスクが高いと判断し、1週間後の血管造影検査により外科的介入治療を考慮することとした。鎮静、降圧治療を継続し再出血なく経過し、第7病日の血管造影検査で動脈瘤の大きさ、形状に変化を認めなかった。(Fig. 2A)。出血としては軽微であったが、同部位以外に出血源を認めず、BBAであれば再出血により致命的な経過をたどる可能性があったため再出血予防の治療を行うこととした。小型でワイドネックの動脈瘤でありコイルは使用せず、flow diverter 効果を期待してLVIS stentを2枚重ねて治療を行った。

虚血性合併症予防のため、手術直前にアスピリン100mgを投与、クロピドグレルを300mgでローディングを行った。翌日よりアスピリン100mg/日、クロピドグレル75mg/日を継続した。第8病日に治療を施行、全身麻酔下、ヘパリン化を行い6Fr shuttle sheath (Cook Medical, Indianapolis, IN, USA)を左総頸動脈、6Fr FUBUKI (Asahi Intecc, Aichi, Japan)を左ICAに留置した。Headway 21 (Microvention-Terumo, Tustin, CA, USA)をCHIKAI 14 (Asahi Intecc)を用いて動脈瘤遠位、中大脳動脈に進めた。LVIS blue 3.5mm×12mmを動脈瘤全体を覆うように展開、留置した。さらに2枚目のLVIS blue 3.5mm×17mmを同様のシステムで1枚目全体を覆うように展開、留置した。直後の造影では動脈瘤の描出はほぼ変化なかった。

術後特に新たな神経学的異常所見の出現はなく、術後 MRI 拡散強調画像で急性期脳梗塞の所見は認めず (Fig. 3A)、MRA でもステントのアーチファクト以外は特に問題なく、末梢の動脈の描出も良好であった。術後 14 日目の血管造影検査で動脈瘤の描出はやや減弱、またやや造影剤が瘤内に停滞する所見を認めた (Fig. 2B)。血管攣縮による症状出現、水頭症出現なく経過良好で 37 病日に新たな神経学的異常所見の出現はなく自宅退院となった。

術後 4 か月で血管造影検査を施行し、動脈瘤の消失を確認、またステント内狭窄がないことを確認した (Fig. 2C)。抗血小板薬は 6 ヶ月でクロピドグレルを終了しその後はアスピリンのみを 1 年継続とした。治療後 1 年間の時点では再出血なく、新たな神経学的異常所見の出現はなく転帰は良好である。

#### 「考察」

破裂内頸動脈 BBA の治療は非常に **challenging** である。治療方法は Ji et al. の報告<sup>6)</sup>で 3 タイプに分類される 1 つ目は ICA を温存しての外科的な BBA 閉塞、具体的には **direct clipping, suturing, clipping after wrapping, clipping after suturing** があり、2 つ目は ICA を温存しての血管内治療での BBA 閉塞、具体的には **coil embolization, stenting, flow-diverting stent, multiple overlapping stent** がある。3 つ目としてはバイパス併用での外科的または血管内治療での親動脈の **trapping** である。いずれの治療方法も合併症率が高く、確立した治療方法はないのが現状である。

血管内治療としては **coil embolization, stenting, flow-diverting**

stent, multiple overlapping stent などがあり、コイル塞栓術に関してはある程度の大きさがあり、嚢状の形状のものには有用といった報告<sup>7,8)</sup>もあるが、BBAは小型でワイドネックの動脈瘤が多く適応となる症例は少ないとされている<sup>1)</sup>。

Matsubara et al.の報告<sup>7)</sup>では BBA 22 症例中、17 症例でコイル塞栓術が可能、Lim et al.の報告<sup>8)</sup>では 33 症例中 30 例でコイル塞栓術が可能であったと報告されている。また両者の報告ではステント併用でのコイル塞栓術の有用性も報告されている。急性期の破裂 BBA に対してもコイル塞栓術の有用性の報告<sup>9)</sup>がされているが、ステント併用コイル塞栓術後の急速な動脈瘤の増大、早期再出血が問題なることがあり、また高い再発率も報告はされている<sup>10,11)</sup>。本症例も 3mm 以下と小型でワイドネックでありコイル留置による単独治療は不可能であると判断した。

Flow diverting stent は純粹に親血管壁内皮形成が可能であり破裂 BBA に対しての理想的な治療法であると考えられている<sup>12)</sup>。破裂 BBA に対する flow diverter 治療では高い動脈瘤閉塞率と長期の良好な転帰が報告されている<sup>13, 14, 15)</sup>。非常に有用な治療として考えられているも、本邦では破裂動脈瘤、小型動脈瘤に対する flow diverter は保険償還されていない。また assist stent も保険適応外であるが治療の必要性から当院倫理委員会承認をもとに assist stent を使用した。

Flow diverter が使用できない場合の代替治療として multiple overlapping stent が検討され、破裂 BBA に対してコイルを併用せず multiple overlapping stent のみでの治療報告がされている

16、17、18、19)。本症例を含め18症例のまとめを Table. 1 に示す。平均7.9か月のフォローアップで再出血は1例、再増大は3例のみであり、その他は良好な動脈瘤閉塞を得ている。使用ステントはほとんどの症例で Enterprise (Johnson&Johnson Codman, Miami, FL, USA) , Neuroform (Boston Scientific/Target Therapeutics, Fremont, CA, USA) を使用しており、LVIS stent を使用しているのは本症例のみである。LVIS stent はナイチノール製の自己拡張型、closed cell 構造のブレードステント、金属充填率は約23%であり、Enterprise (10) % , Neuroform (11%) よりも高く、Pipeline embolization device (PED; Medtronic Neurovascular, Irvine, California, USA) (約30-35%) より低くなっている。ステントを何枚使用するのが効果的であるかはまだ明らかになっていない。Wang et al. の報告<sup>20)</sup> は、computational fluid dynamics (CFD) 解析で LVIS, Enterprise, Pipeline の flow diverter 効果の比較を行っている。CFD のパラメータの velocity, WSS (Wall shear stress), Pressure 計測を行い、Double LVIS は single Pipeline と比較して有意に WSS, velocity を低下させている。LVIS 2枚で pipeline 同等の flow diverter effect を期待できる結果であった。

Multiple overlapping stent 治療の問題点としては、動脈瘤消失に時間がかかり、その間に再出血、再増大のリスクがあることがあげられる。また虚血性合併症の予防のため multiple overlapping stent では flow diverter に準じて抗血小板薬2剤併用が選択されるため出血性合併症のリスクもある。過去の報告から平均8.8か

月、動脈瘤消失までに時間を要しており、本症例でも動脈瘤消失まで約4か月を要している。消失までの期間は再出血のリスクがあるため慎重なフォローアップが必要であり、本症例では急性期は安静と降圧療法で慎重な経過観察を行い、急性期後も厳格な降圧治療を継続した。再出血時には開頭でのICAトラッピング、ハイフローバイパス併用での治療、または血管内治療でのICAトラッピングを行う計画であった。また留置後動脈瘤の再増大は治療が難しく、追加でのコイル塞栓術、またはさらにステントを追加するかなど治療方法の選択肢は少ない。慢性期に動脈瘤が残存する際にはステントの追加留置を行う計画であった。また抗血小板薬2剤併用は出血性合併症のリスクとなるため可能なかぎり単剤への減量が望ましいが抗血小板薬2剤併用の期間に関するコンセンサスはない。本症例では6か月で単剤へ減量し虚血性合併症、出血性合併症もなく経過している。

#### 「結語」

破裂内頸動脈 BBA に対するコイルを併用せずステント留置のみの治療を報告した。破裂、小型動脈瘤ではコイル塞栓は難しく、亜急性期においての LVIS stent 複数留置は有用な方法と考えられた。しかし本治療は確立された治療方法でなく、虚血性合併症のリスク、また抗血小板薬2剤併用による出血のリスクもあるため、今後有効性、安全性の検討がさらに必要となる。

#### 「利益相反開示」

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

「文献」

1. Meling TR, Sorteberg A, Bakke SJ, et al. Blood blister-like aneurysms of the internal carotid artery trunk causing subarachnoid hemorrhage: treatment and outcome. *J Neurosurg* 2008; 108: 662-71.
2. Szmuda T, Sloniewski P, Waszak PM, et al. Towards a new treatment paradigm for ruptured blood blister-like aneurysms of the internal carotid artery? A rapid systematic review. *J Neurointerv Surg* 2016; 8: 488-94.
3. Peschillo S, Cannizzaro D, Caporlingua A, et al. A Systematic review and Meta-Analysis of Treatment and Outcome of Blister-like Aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol* 2016; 37: 856-61.
4. Horie N, Morikawa M, Fukuda S, et al. Detection of bleed blister-like aneurysm and intramural hematoma with high-resolution magnetic resonance imaging. *J Neurosurg* 2011; 115: 1206-9.
5. Le Feuvre DE, Taylor AG. The management of very small/blister internal carotid artery aneurysms. *Interv Neuroradiol* 2011; 17: 431-4.
6. Ji T, Guo Y, Huang X, et al. Current status of the treatment of blood blister-like aneurysm of the supraclinoid internal carotid

- artery: A review. *Int J. Med Sci* 2017; 14(4): 390-402.
7. Matsubara N, Miyachi S, Tsukamoto N, et al. Endovascular coil embolization for saccular-shaped blood blister aneurysms of the internal carotid artery. *Acta Neurochir (Wien)* 2011; 153(2): 287-94.
  8. Lim YC, Kim BM, Suh SH, et al. Reconstructive treatment of ruptured blood blister-like aneurysms with stent and coil. *Neurosurgery* 2013; 73(3): 480-8.
  9. Korja M, Rautio R, Valtonen S, et al. Primary treatment of ruptured blood blister aneurysms with stent-assisted coil embolization: report of two cases. *Acta Radiol* 2008; 49. 180-3.
  10. Ahn JY, Cho JH, Jung JY, et al. Blister-like aneurysms of the supraclinoid internal carotid artery: challenging endovascular treatment with stent-assisted coiling. *J Clin Neurosci* 2008; 15: 1058-61.
  11. Ihn YK, Kim SH, Sung JH, et al. The efficacy of endovascular treatment of rupture blood blister-like aneurysms using stent-assisted coil embolization. *Interv Neuroradiol* 2012; 18: 432-41.
  12. Heiferman DM, Billingsley JT, Kasliwal MK, et al. Use of flow-diverting stents as salvage treatment following failed stent-assisted embolization of intracranial aneurysms. *J Neurointerv Surg* 2015; 8(7): 692-5.

13. Cinar C, Oran I, Bozkaya H, et al. Endovascular treatment of ruptured blister-like aneurysms with special reference to flow-diverting strategy. *Neuroradiology* 2013; 55: 441-7.
14. Chalouhi N, Zanaty M, Tjoumakaris S, et al. Treatment of blister-like aneurysms with Pipeline embolization device. *Neurosurgery* 2014; 74: 527-32; discussion 32.
15. Hu YC, Chung C, Mehta H, et al. Early angiographic occlusion of ruptured blister aneurysms of the internal carotid artery using Pipeline Embolization device as a primary treatment option. *J Neurointerv Surg* 2014; 6: 740-3.
16. Fiorella D, Albuquerque FC, Deshmukh VR, et al. Endovascular reconstruction with Neuroform stent as monotherapy for the treatment of uncoilable intradural pseudoaneurysms. *Neurosurgery* 2006; 59(2): 291-300.
17. Gaughen JR, Hassan D, Dumont AS, et al. The efficacy of endovascular stenting in the treatment of supraclinoid internal carotid artery blister aneurysms using a stent-in-stent technique. *AJNR Am Neuroradiol* 2010; 31: 1132-8.
18. 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 aneurysm. *AJNR Am J Neuroradiol* 2011; 32(4): 764-71.
19. 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; 6: 184-94.

20. 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: 199-209.

「図表の説明」

Fig. 1

- A: 入院時 MRI FLAIR (fluid-attenuated inversion recovery) 画像にて左シルビス裂にくも膜下出血を認める。
- B: 血管造影検査 左内頸動脈造影 (3D reconstruction image) で左内頸動脈 supraclinoid portion に血豆状動脈瘤を認める。(white arrow)

Fig. 2

- A: 術直後の血管造影 左内頸動脈造影で動脈瘤の残存を認める。(white arrow head)

B: 術後 14 日の血管造影検査 左内頸動脈造影で動脈瘤の描出はやや減弱し、軽度動脈瘤内に造影剤の停滞を認める。

(white arrow head)

C: 術後 4 か月の血管造影検査 左内頸動脈造影で動脈瘤の消失とステント内狭窄がないことを確認した。

(white arrow head)

Fig. 3: 術後 M R I 拡散強調画像で急性期脳梗塞は認めない。

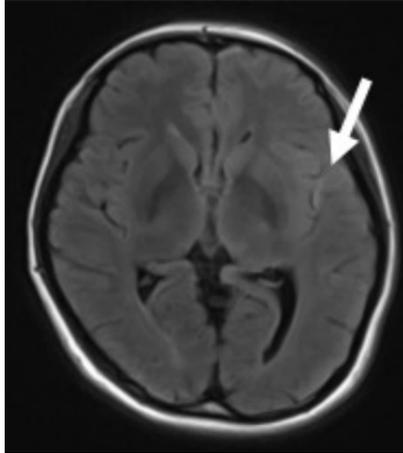


Figure 1A

64x73mm (72 x 72 DPI)



Figure 1B

68x69mm (72 x 72 DPI)



Figure 2A

46x83mm (72 x 72 DPI)

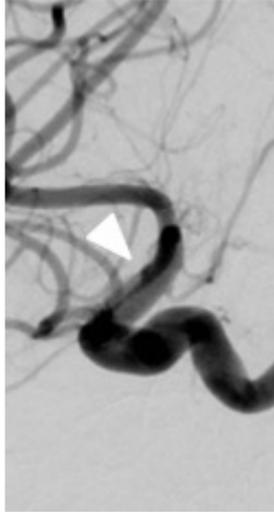


Figure 2B

43x82mm (72 x 72 DPI)

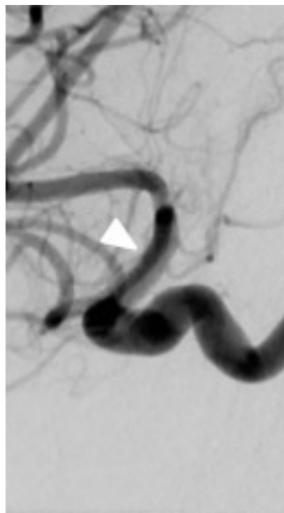


Figure 2C

45x82mm (72 x 72 DPI)

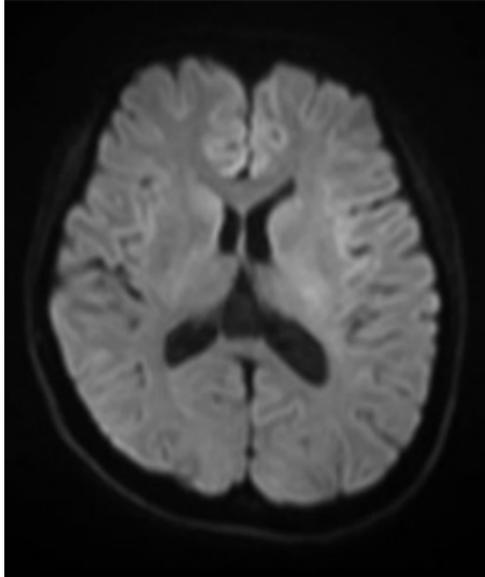


Figure 3

78x93mm (72 x 72 DPI)

Review of Multiple Overlapping Stent as monotherapy for ruptured BBA of the ICA

Author	Age	Gender	Hunt and Kosnik grade	Stent	Angiographic follow up (month)	Aneurysm occlusion	Outcome (mRS)	
Fiorella D et al.	61	F	NA	Nx3	9	+	0	
Neurosurgery 2006 16)	51	F	NA	Nx2	14	+	0	
	46	M	NA	Nx2	4	+	0	
Gaughen et al.	66	F	I	Ex2	7	+	1	
Am J Neuroradiol 2010 17)	36	F	III	Ex2	4	+	1	
	47	F	II	Ex2	10	+	1	
	40	M	II	Nx2	12	+	1	
	42	M	III	Ex2	1	-	3	rebleeding
Meckel S et al.	41	M	IV	Nx2	1	-	2	regrowth
Am J Neuroradiol 2011 18)	52	F	I	Wx2	1	-	2	regrowth
Walsh KM et al.	60	F	NA	Nx2	10	+	1	
J Neurointervent Surg 2014 19)	80	F	II	N+E	6	+	1	
	55	F	III	N+E	1	-	2	regrowth
	52	M	III	Ex2	12	+	1	
	53	M	II	Ex3	3	+	1	
	60	F	II	Ex2	24	+	1	
	71	M	III	Ex2	12	+	2	
Present case	45	F	I	Lx2	4	+	0	
E: Enterprise, L: Lvis, mRS: modified Rankin Scale, N: Neuroform, NA: not available, W: Wingspan								