

急速に増大しコイル塞栓術のみで治療しえた内頸動脈 blister-like 動脈瘤の2症例：症例報告

広田暢夫 徳植一樹 加藤晶人 保格宏務 櫻井 孝 三代貴康 露無松平

Two cases of rapidly enlarged blood blister-like aneurysm of internal carotid artery successfully treated by coil embolization alone: case report

Nobuo HIROTA Kazuki TOKUUE Akihito KATOH Hiromu HOKAKU
Takashi SAKURAI Takayasu MIYA Matsutaira TSUYUMU

Department of Neurosurgery, Yokosuka Municipal General Hospital Uwamachi

●Abstract●

Objective: To report two cases of rapidly enlarged blood-blister like aneurysm (BBA) of internal carotid artery, which were successfully treated by aneurysmal coiling.

Case presentation: Case 1: A 44 year old woman suffering from subarachnoid hemorrhage (SAH) was referred to our hospital. 3DCT angiography revealed BBA, though surgical treatment could not be done immediately because of the administration of anti-TNF- α monoclonal antibody for rheumatoid arthritis. The aneurysm had been enlarged for a few days after the onset, therefore aneurysmal coiling was done. The clinical course was good with mRS 0 and rerupture or regrowth of the aneurysm not observed 2 years after the treatment. Case 2: A 39 year old man suffering from SAH was admitted. Digital subtraction angiography demonstrated BBA which had been enlarged for a few days after the onset. It was treated by aneurysmal coiling after the enlargement. The patient was discharged from the hospital without any neurological deficit. Recanalization of the aneurysmal neck had been seen after the treatment, however regrowth or dome filling was not observed on MR angiography performed 1 year after the onset.

Conclusion: Coil embolization can be one of the treatment options for saccular-shaped BBA in the acute stage; however, strict observation is needed against recanalization and regrowth of the aneurysm.

●Key Words●

aneurysmal enlargement, blood blister-like aneurysm, coil embolization

横須賀市立うわまち病院 脳神経外科
<連絡先：広田暢夫 〒238-8567 神奈川県横須賀市上町 2-36 E-mail : nobuo@bb.mbn.or.jp >

(Received March 21, 2011 : Accepted May 11, 2011)

緒言

Blood blister-like aneurysm (BBA) は、動脈瘤クリッピング術では、脆弱な動脈瘤壁が裂けやすく注意を要することが知られており、再出血予防のスタンダードな治療法は確立していない。今回、くも膜下出血で発症し、治療待機中に急速に増大した BBA に対し、瘤内コイル塞栓術を施行し再出血を防止し得た 2 症例を経験したので報告する。

症例呈示

1. 症例 1

患者：44 歳，女性。

主訴：頭痛。

既往歴：慢性関節リュウマチ (RA)。レミケード (抗 TNF- α モノクロナール抗体) 点滴治療中。

現症：突然の頭痛にて近医受診，頭蓋内出血を疑われ当院を紹介受診した。

入院時神経症状：意識清明，神経学的に異常はなかった

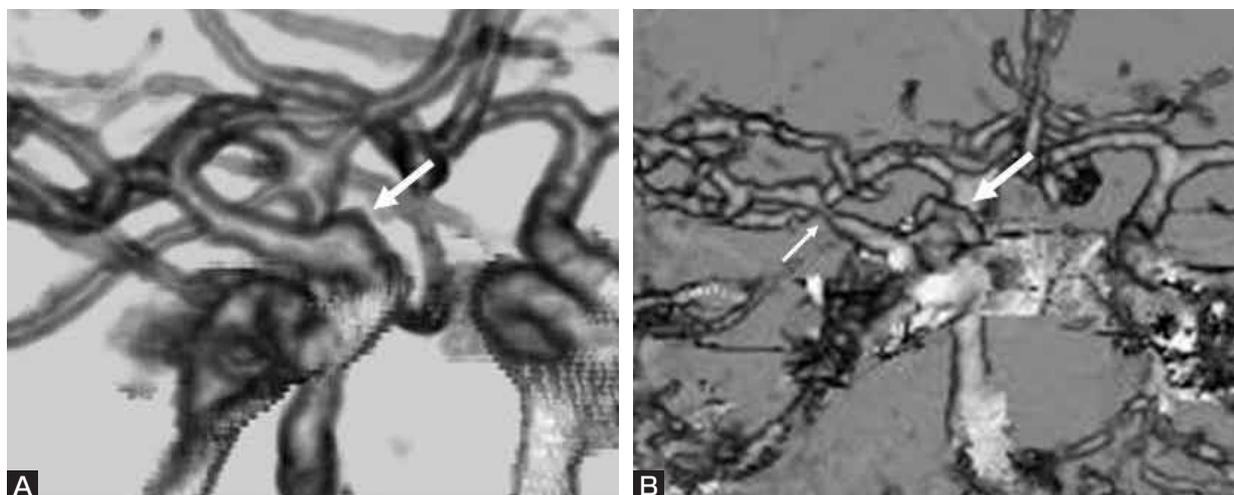


Fig. 1

A : 3D angiography shows a bulge on the anterior wall of the right internal carotid artery (Arrow).

B : Blood blister-like aneurysm (large arrow) and stenosis of the carotid artery (small arrow) are observed.

が強い頭痛の訴えあり。

入院時画像所見：頭部CTにてFisher group IIIのくも膜下出血を認め、subarchnoid hemorrhage (SAH), World Federation of Neurosurgical Societies (WFNS) grade 2と診断した。3 dimensional computed tomographic angiography (3DCT angiography)にて右内頸動脈にBBAを認めた (Fig. 1A)。

入院時治療方針：RAの内科担当医師にコンサルトしたところ、4日前にレミケードを投与しており、抗TNF- α モノクローナル抗体投与直後は創傷治癒遅延の可能性のため急性期手術は避けた方がよいとの指摘があり、また急性期のクリッピング術やトラッピング術による術中出血、脳虚血のリスクが高いことから待機的治療とし、スパズム期以降にballoon occlusion test (BOT)を評価した上で extracranial/intracranial artery (EC/IC) bypass術+ IC trappingを施行することとした⁹⁾。

入院後経過：塩酸ジルチアゼムの持続投与およびangiotensin receptor blocker (ARB), Ca channel blocker, α -blockerなどの内服による厳重な血圧管理(最高血圧で100~130 mmHgを維持)および気管内挿管を要しない程度のプロポフォール持続静脈内投与による鎮静を維持し経過をみた。発症9日目に施行した3DCT angiographyにて、瘤は著明に増大しており、また患側内頸動脈C1部の脳血管攣縮による高度狭窄所見を認めた (Fig. 1B)。この時期左上下の筋力低下が出現、軽快

増悪を繰り返したため症候性脳血管攣縮と判断し輸液量の増量で対処し保存的加療を続行した。発症11日目、突然の意識障害出現、意識レベルJapan coma scale (JCS100) 台となり緊急CTを施行したところ僅かなSAHの増加を認めminor leakと診断した。その後意識状態は改善し、15日目にdigital subtraction angiography (DS angiography)を施行、血管攣縮は軽快しており、嚢状動脈瘤の形態に変化していたため引き続き瘤内塞栓を施行する計画を立てた。

血管内治療経過：全身麻酔下に手技を開始した。6Frロングシースを右大腿動脈に留置、6Fr Envoy (Cordis, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA)を右内頸動脈に留置した。右内頸動脈C2部、4×6 mmのBBAに対し、まずHyperGlide 4 mm×10 mm (ev3 Neurovascular, Irvine, CA, USA)をballoon remodeling用にneckを覆うように留置、次にExcelsior SL-10 angle 90° (Boston Scientific, Natick, MA, USA)をTransend EX Platinum (Boston Scientific, Natick, MA, USA)にて瘤内に誘導した。Guglielmi detachable coil (GDC) 10 soft 4 mm×8 cm (Boston Scientific, Natick, MA, USA)にてframing、暫時サイズダウンし計10本、42 cmを瘤内に留置した。7本目のコイルの母血管への逸脱を防ぐため一度だけバルーンを使用した。動脈瘤は造影されなくなり手技を終了した (Fig. 2A, B)。

塞栓術後経過：術後合併症はなく、厳重な血圧管理を続

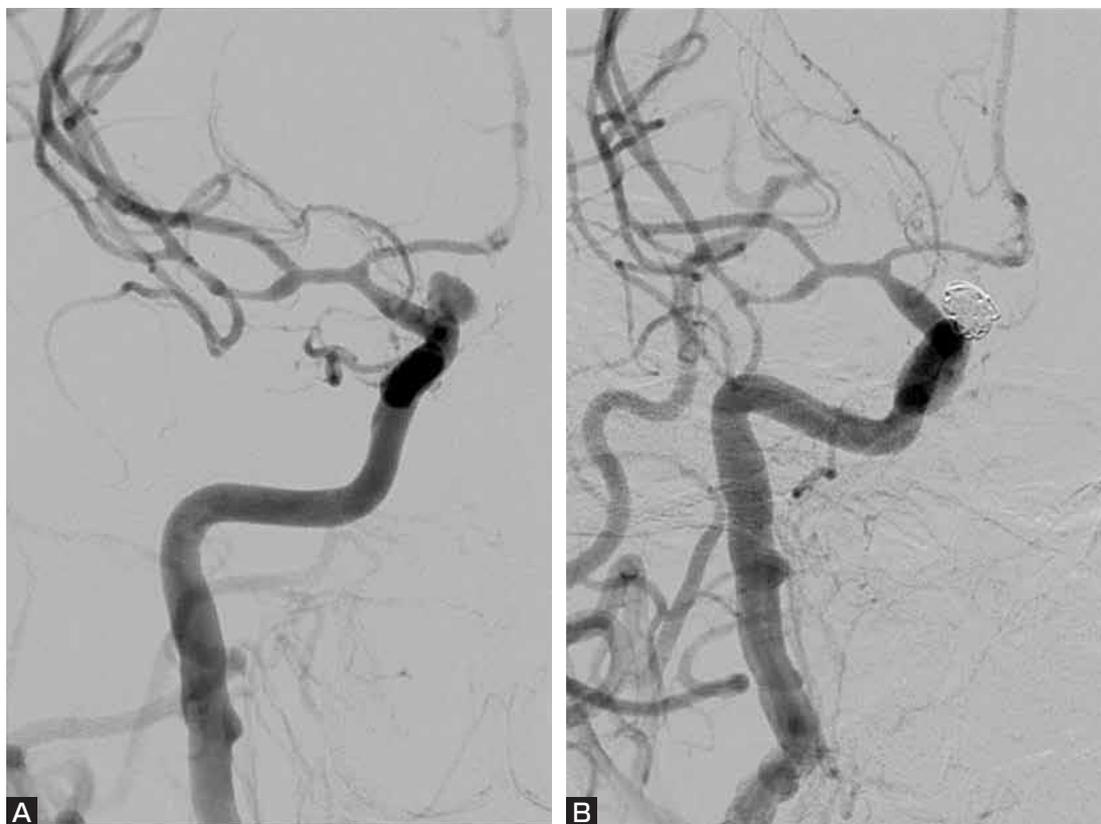


Fig. 2
A : The blood blister-like aneurysm is shown on the DS angiography.
B : The photograph after the aneurysmal coil embolization shows complete obliteration of the aneurysm.



Fig. 3
MR angiography visualizes the complete obliteration of the aneurysm 2 years after the onset (arrow).

行した。その後の DS angiography にも瘤の再増大は認めず, modified Rankin scale (mRS) 0 にて独歩退院した。発症 2 年経過後の magnetic resonance (MR) angiography にも動脈瘤の再発は認めていない (Fig. 3)。

2. 症例 2

患者 : 39 歳, 男性。

主訴 : 頭痛, 意識障害。

既往歴 : 特記すべきことなし。

現症 : 突然の頭痛にて発症。軽度意識障害もあり救急車にて当院搬送された。

入院時神経症状 : 意識状態は Glasgow coma scale (GCS) E4V4M6, 麻痺などは認めず強い頭痛の訴えあり。

入院時画像所見 : 頭部単純 CT にて Fisher group III の



Fig. 4

A : DS angiography shows a bulge on the lateral wall of the internal carotid artery (arrow).

B : The enlarged blood blister-like aneurysm is observed.

くも膜下出血を認め、SAH, WFNS grade 2 と診断した。DS angiography にて右内頸動脈にBBAを認めた (Fig. 4A)。

入院時治療方針：急性期開頭によるクリッピング術やラッピング術、これらが困難であったり出血した場合の内頸動脈トラッピング術を検討したが、本動脈瘤が非常に脆弱であり術中の出血が多いことや急性期トラッピング術は虚血性合併症を起こしやすいことなどを考慮して待機的治療とした⁹⁾。スパズム期を過ぎた2週間後、BOTを評価した上でEC/IC bypass術+IC trappingを計画した。

入院後経過：症例1と同様、プロポフォールによる鎮静と厳重な血圧管理のもと経過を観察した。BBAの急速増大を早期発見するため、Day3, 6にDS angiographyを施行、わずかな瘤の増大を認めたが経過観察を続けた。神経症状に大きな変化は認めなかったが、Day11に施行した3DCT angiographyにて瘤の著明な増大を認め、再破裂の危険が高いと考えたが、脳血管攣縮の時期でありトラッピング術は虚血の危険が高く瘤内塞栓術を施行することとした (Fig. 4B)。

血管内治療経過：全身麻酔下に手技を開始した。6Fr ロングシースを右大腿動脈に留置、6Fr Envoyを右内頸動脈に留置した。脳血管撮影では、右内頸動脈C2部に4×5mmのBBAを認めた (Fig. 5A)。瘤内塞栓可能と判断、HyperGlide 4mm×10mmをballoon remodeling用に留置し、次にExcelsior SL-10 angle 90°をTerumo GT wire 012 double angle (TERUMO, Tokyo, Japan)にて瘤内に誘導した。GDC 10 360 soft 4mm×8cmにてframing、暫時サイズダウンし計7本、30cmを適時バルーンを使用し瘤内に留置した。動脈瘤は造影されなくなり手技を終了した (Fig. 5B)。

塞栓術後経過：厳重な血圧管理の継続にて合併症なく経過した。術後経過観察のためのDS angiographyにてネック付近の僅かな再開通を認めたため、再発の危険性を考慮しBOTを施行、tolerantであったため患者にICトラッピング術を勧めたが経過観察の希望がありmRS 0で独歩退院した¹²⁾。1年後のMR angiographyにてneck remnantの所見に変化はなく経過良好である (Fig. 6)。

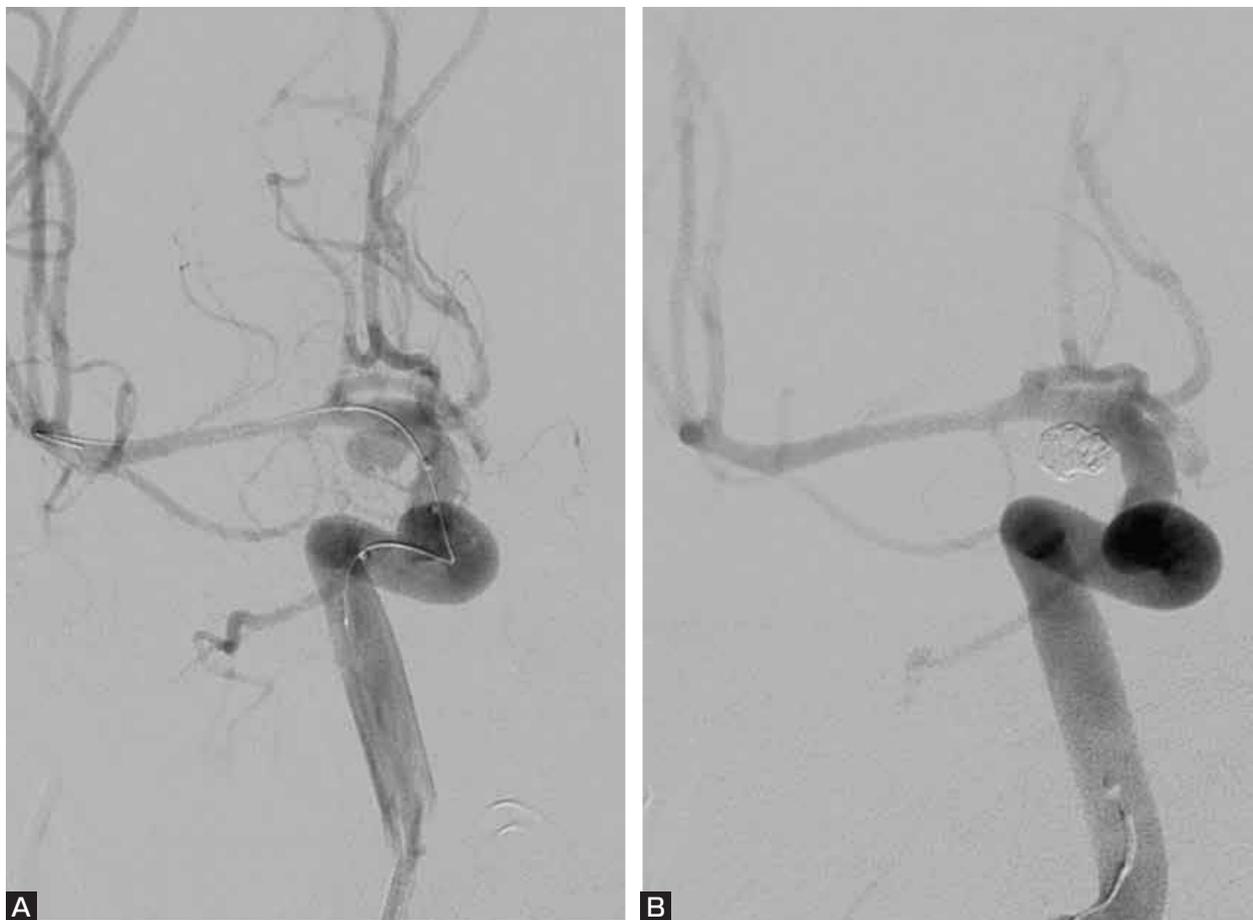


Fig. 5

A : Before the treatment, blood blister-like aneurysm on the lateral wall is shown on DS angiography.

B : DS angiography image shows complete obliteration of the aneurysm.

考 察

BBA はくも膜下出血の原因の0.4~2.7%を占めるまれな動脈瘤である⁴⁾。通常高血圧¹⁰⁾、動脈硬化症¹⁾を合併することが多く、動脈解離が関与している症例もあると考えられている¹⁰⁾。これに対し、Ohkumaらは、BBAとIC dissecting aneurysmのethiologyは異なり、同じカテゴリーとはすべきでないとしており¹¹⁾、これを支持する報告としてBBAの組織学的検討では解離は証明されず、動脈壁の欠損部に外膜と結合組織のみを認めたとの報告がある³⁾。また本動脈瘤にはさまざまな名称があり用語上の混乱もある。症例2では動脈瘤は内頸動脈の外側壁に存在しており、いわゆるIC anterior wall、またはIC dorsal wall aneurysmとの名称は適切ではない。これに対しBBAという用語は特定の部位を示してはならず、また画像所見上、BBAとdissectionを明確に区別

することは困難であり、本2症例はひとつのentityとしてBBAとした。

BBAの再破裂予防としてのdirect clippingは、aneurysmal wallが脆弱であり、術中破裂が多く発生し治療成績が悪い^{9,10)}。近年、trapping + EC/IC bypass⁴⁾、コイルによるICトラッピング¹²⁾、stentやcovered stent単独またはコイル塞栓術の併用^{5,6)}など治療成功例の報告が散見される。手術的治療による成功例の多くは内頸動脈のトラッピング術であり、本動脈瘤の多くが単純なsaccular aneurysmとは異なる成因によることを考えるとトラッピング術は理に適っている。トラッピング術施行に際しては脳灌流圧の低下が脳虚血を引き起こすかの評価が重要であり、術前のBOTが必須であるが、偽陰性の存在が問題となる。Kamijoらはsurgical trappingにradial artery graftによるEC/IC bypassを加えることにより良好な治療結果を報告している⁴⁾。これに対し血管



Fig. 6
MR angiography reveals the recanalization of the aneurysm on the aneurysmal neck 1 year after the treatment, which was not enlarged during the 10-month recovery.

内治療では bare stent または covered stent を用いて罹患血管を温存しつつ再破裂予防を行い得る点が優れているものの、再破裂予防の確実性及び合併症については今後の症例の集積が待たれる⁵⁾。

本動脈瘤の特徴は未治療のもののみならず、コイル塞栓術後やクリッピング術後に急速に増大し再破裂するものがあることであり、頻回の画像所見による観察が必要である^{1,6,7,12)}。提示した2症例は、入院時の3DCT angiography 上、血栓化動脈瘤などは否定的であり、画像所見上の動脈瘤増大は、壁の薄いBBAに特有な所見と判断した。症例1では、抗TNF- α モノクローナル抗体投与直後のため手術的加療を待機的に行わざるを得ず、その過程で瘤の急速増大を認めるに至った。経過中再出血を来したこともあり、saccular aneurysm に対する治療法と同様、瘤内塞栓術を施行せざるを得なかった。また症例2では、症例1の結果を踏まえ、瘤の急速増大による切迫破裂を疑った場合は、症例1と同様の瘤内塞栓術を行うこととした。その上で、BBAの急性期トラッピング術の成績が悪い点からICトラッピング術は慢性期に行うこととし、BOTの結果、虚血耐性がない場合radial artery graftによるhigh flow bypassを、虚血耐性がある場合浅側頭動脈中大脳動脈吻合術を併用し施行する計画を立てた^{2,12)}。結果的にはスパズム期に瘤の増大を認め、瘤内塞栓術を施行し、患者の意向もありそのまま経過観察するに至った。2症例とも治療待機中に動脈瘤の急速な増大を見たため、切迫破裂と考えレスキューの意味で瘤内コイル塞栓術を施行した。瘤内塞栓では再増大、再破裂の危険もあり、あくまで一時的に出血を予防し、くも膜下出血急性期を過ぎスパズムの危険が去った後、トラッピング術をより安全に施行し得るまでの緊

急避難的な治療と考えたが、結果として瘤内コイル塞栓術単独で再出血予防ができた。重要なのは、本動脈瘤の急速な増大を見逃さないよう、少なくとも1週間ごとの経時的な画像診断を施行することである。経過観察にはMR angiography や3DCT angiography が有効であり、再開通や瘤の増大があった場合はDS angiographyにて確認の上、速やかに出血予防の処置を施すことが重要と考える。瘤内塞栓単独で出血予防できるかトラッピング術を要するかの判別は術前には困難であり、仮に瘤内塞栓のみを施行した場合慎重なfollowを要すると考える^{6,12)}。我々はDS angiographyによる確認に加え、単純レントゲンによるcoil compactionの有無、MR angiographyによる再開通の評価を頻回に施行することにより塞栓術後再増大を評価することができた。瘤内塞栓の適応については慎重に検討する必要があるが、本例の経験からは少なくともレスキューとして有用であり、画像所見の頻回の評価にて再出血のリスク回避が可能であると考え。Matsubaraらは、saccular shaped BBAに対する瘤内コイル塞栓術を施行した9症例中good recovery 66.7%、moderate disability 11.1%と良好な成績を報告している⁸⁾。近年、BBAの急性期治療として、bypassを併用した手術または血管内治療によるトラッピング術^{4,13)}やstent with a stent, covered stentを用いた母血管を温存した治療の報告が散見されるようになり、治療の主流は急性期再破裂予防に向かうと考える^{4,5,6,12)}。しかし、BBAに対する治療方法については手術的治療および血管内治療両面からの報告があるものの、どの症例にどちらの治療を選択するかについて比較した報告はない。バイパス術にはrecipientの急性および慢性閉塞の問題があり、covered stent、頭蓋内stentは本邦ではoff labelの使用

に限定されるなどの問題があり、また瘤内塞栓術には再開通の問題があり、現時点では個々の症例に応じた対応を検討するしかない。今回提示した症例のような、急性期コイル塞栓術を施行した症例で、仮に瘤の再増大や再開通を来した場合は、原則として慢性期にトラッピング術を考慮すべきと考えるが、慢性期まで待機できない症例やバイパス術のリスクの高い症例では、コイルによる瘤内再塞栓も検討すべきと考える。

結 語

急速に増大し saccular aneurysm 様となった BBA に対する瘤内コイル塞栓術は、少なくとも一時的な再破裂予防に有用と考える。報告した 2 症例はコイル塞栓術のみで再出血を予防し得たが、文献的には再発症例も稀ではなく頻回の術後画像評価を要する。コイル塞栓術にて再発した場合は、バイパスを併用した IC trapping や stent を用いた治療を考慮する必要がある。

文献

- 1) Abe M, Tabuchi K, Yokoyama H, et al: Blood blisterlike aneurysms of the internal carotid artery. *J Neurosurg* **89**:419-424, 1998.
- 2) Başkaya MK, Ahmed AS, Ateş O, et al: Surgical treatment of blood blister-like aneurysms of the supraclinoid internal carotid artery with extracranial-intracranial bypass and trapping. *Neurosurg Focus* **24**:E13, 2008.
- 3) Ishikawa T, Nakamura N, Houkin K, et al: Pathological consideration of a "blister-like" aneurysm at the superior wall of the internal carotid artery: case report. *Neurosurgery* **40**:403-405, 1997.
- 4) Kamijo K, Matsui T: Acute extracranial-intracranial bypass using a radial artery graft along with trapping of a ruptured blood blister-like aneurysm of the internal carotid artery. *J Neurosurg* **113**:781-785, 2010.
- 5) Kim BM, Chung EC, Park SI, et al: Treatment of blood blister-like aneurysm of the internal carotid artery with stent-assisted coil embolization followed by stent-within-a-stent technique. Case report. *J Neurosurg* **107**:1211-1213, 2007.
- 6) Lee BH, Kim BM, Park MS, et al: Reconstructive endovascular treatment of ruptured blood blister-like aneurysms of the internal carotid artery. *J Neurosurg* **110**:431-436, 2009.
- 7) Lee CC, Hsieh TC, Wang YC, et al: Ruptured symptomatic internal carotid artery dorsal wall aneurysm with rapid configurational change. Clinical experience and management outcome: an original article. *Eur J Neurol* **17**:1277-1284, 2010.
- 8) Matsubara N, Miyachi S, Tsukamoto N, et al: Endovascular coil embolization for saccular-shaped blood blister-like aneurysms of the internal carotid artery. *Acta Neurochir (Wien)* **153**:287-294, 2011.
- 9) 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* **108**:662-671, 2008.
- 10) Ogawa A, Suzuki M, Ogasawara K, et al: Aneurysms at nonbranching sites in the supraclinoid portion of the internal carotid artery: internal carotid artery trunk aneurysms. *Neurosurgery* **47**:578-586, 2000.
- 11) Ohkuma H, Nakano T, Manabe H, et al: Subarachnoid hemorrhage caused by a dissecting aneurysm of the internal carotid artery. *J Neurosurg* **97**:576-583, 2002.
- 12) Park JH, Park IS, Han DH, et al: Endovascular treatment of blood blister-like aneurysms of the internal carotid artery. *J Neurosurg* **106**:812-819, 2007.
- 13) Shimizu H, Matsumoto Y, Tominaga T: Non-saccular aneurysms of the supraclinoid internal carotid artery trunk causing subarachnoid hemorrhage: acute surgical treatments and review of literatures. *Neurosurg Rev* **33**:205-216, 2010.

JNET 5:50-56, 2011

要 旨

【目的】急速増大し、コイル瘤内塞栓を施行した blood blister-like aneurysm の 2 症例を報告する。【症例 1】44 歳女性、くも膜下出血 grade 2。3 dimensional computed tomographic angiography にて blood blister-like aneurysm と診断。慢性関節リウマチにて抗 TNF- α モノクローナル抗体の投与を受けており急性期手術は行えず待機治療としたが、瘤の急速増大を認めコイル塞栓術を施行した。mRS 0 で退院、2 年経過後瘤の増大は認めない。【症例 2】39 歳男性、くも膜下出血 grade 2。Digital subtraction angiography にて僅かな膨隆を示す blood blister-like aneurysm を認め、9 日目には約 5 mm に増大しコイル塞栓術を施行した。瘤の neck remnant の状態は変わらず 1 年後も経過良好である。【結語】Blood blister-like aneurysm のコイル塞栓術は saccular shape の場合治療 option のひとつと考えるが治療前後の急速な瘤の増大に注意する必要がある、頻回の画像所見の追跡が重要である。