

症例報告

タイトル: 瘤内塞栓術を行った動静脈瘻を伴う外傷性偽性外頸動脈瘤の1例

Title: **Traumatic pseudoaneurysm of the external carotid artery with arteriovenous fistula treated with endosaccular embolization**

著者名: 池田宏之, 今村博敏, 足立秀光, 上野泰, 石川達也, 蔵本要二, 坂井信幸

Authors: Hiroyuki Ikeda, Hirotoshi Imamura, Hidemitsu Adachi, Yasushi Ueno, Tatsuya Ishikawa, Yoji Kuramoto, Nobuyuki Sakai

所属施設: 神戸市立医療センター中央市民病院 脳神経外科

Affiliations: Department of Neurosurgery, Kobe City Medical Center General Hospital, Kobe, Hyogo, Japan

[連絡著者]

池田宏之=京都大学大学院医学研究科脳神経外科 (〒606-8507 京都府京都市左京区聖護院川原町 54)

TEL : 075-751-3459 FAX : 075-752-9501

E-mail : rocky@kuhp.kyoto-u.ac.jp

Hiroyuki Ikeda, M.D., Department of Neurosurgery, Kyoto University Graduate School of Medicine, 54 Kawahara-cho, Shogoin, Sakyo-ku, Kyoto 606-8507, Japan

**Key Words:** traumatic pseudoaneurysm, arteriovenous fistula, endosaccular embolization

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。

## 要旨

【目的】非常に稀な動静脈瘻を伴う外傷性偽性外頸動脈瘤に対して、瘤内塞栓術により再破裂を予防し得た最初の報告として提示する。

【症例】32歳，男性．両側下顎枝垂直切除術4日後に左頬部の拍動性腫脹の精査で血管撮影を行い，左外頸動脈本幹に動静脈瘻を伴う偽性動脈瘤を認めた．母血管を温存するために，緊急で瘤内塞栓術を行い，偽性動脈瘤と動静脈瘻の完全閉塞が得られ，症状は完全に消失し経過は良好である．

【結論】母血管の温存が望ましい動静脈瘻を伴う外頸動脈の偽性動脈瘤に対して，病変部が皮膚や粘膜面から離れていれば瘤内塞栓術が再破裂の予防処置として有用であると考えられた．

## 緒言

動脈壁の穿孔，断裂，解離などの動脈損傷の結果として，偽性動脈瘤，動静脈瘻は稀に発生する<sup>1,2</sup>．発生時期が一樣ではなく，自然軽快する症例が存在し，無症候で経過して認識されない症例が存在することを考慮すると，明確な発生頻度を論じることは難しいと思われる<sup>3</sup>．Richら<sup>2</sup>によると、約7500症例の末梢血管損傷の中で偽性動脈瘤と動静脈瘻の発生頻度は、それぞれ3.5%と3.9%と報告されている．特に外頸動脈は周囲の軟部組織と下顎骨の存在により外傷から保護されているため，臨床診療で外頸動脈本幹とその分枝血管に発生する外傷性偽性動脈瘤に遭遇することは比較的稀である<sup>4,5</sup>．近年，下顎矯正手術の発展と共に，術後に外頸動脈本幹とその分枝血管に偽性動脈瘤が発生しうることが指摘されている<sup>6</sup>．また，外傷性の偽性動脈瘤が発生した症例の中で動静脈瘻を合併する頻度は4.4%と報告されており<sup>7</sup>，外傷に伴う同じ損傷部での偽性動脈瘤と動静脈瘻の同時発生は稀に起こり得ると考えられる<sup>8-13</sup>．今回我々

は、下顎矯正手術 4 日後に非常に稀な動静脈瘻を伴う外傷性偽性外頸動脈瘤の症例を経験した。我々が渉猟する限りでは、動静脈瘻を伴う外傷性偽性外頸動脈瘤に対して瘤内塞栓術により再破裂を予防し得た最初の報告として提示する。

## 症例呈示

**患者：**32 歳，男性。

**主訴：**左頬部腫脹。

**既往歴：**外傷歴なし。

**家族歴：**特記事項なし。

**現病歴：**下顎前突症に対して全身麻酔下で両側下顎枝垂直切除術が施行された。左下顎骨内側の剥離操作の際に、動脈性の出血を認めたが術中の圧迫操作で止血が得られた。抜管時に急激な左頬部腫脹を認めたが、圧迫による保存的加療で左頬部腫脹は徐々に軽快した。下顎矯正手術 3 日目に、左頬部腫脹の増悪、腫脹部に動脈性の拍動が出現し、口腔内への出血があり、圧迫による保存的加療を行った。拍動性の左頬部腫脹の改善が得られなかったため、下顎矯正手術 4 日目に脳神経外科へ紹介となった。

**画像所見：**緊急で血管撮影を行い、左外頸動脈撮影で 2 個の動脈瘤と血流の速い動静脈瘻を認め、外頸動脈末梢の描出は不良であった。動静脈瘻は pterygoid venous plexus に繋がり、流出路は左外頸静脈であり、頭蓋内静脈への逆流は認めなかった (Fig.1)。3D 回転血管撮影で外頸動脈本幹に囊状動脈瘤 (dome 6.3mm, height 11.9mm, neck 3.5mm) を認め、動脈瘤の後方の neck 近傍に動静脈瘻を伴っていた。また、分枝血管の顔面横動脈にも囊状動脈瘤 (dome 7.6mm, height

8.1mm, neck 3.4mm)を認め、この動脈瘤には動静脈瘻は合併していなかった (Fig. 2).

**治療方針：**これらの動脈瘤は、外傷により発生した偽性動脈瘤であり、母血管閉塞術が適していると考えられた。しかし、若年者で、かつ術後の創傷治癒の観点から母血管の温存が望ましいと思われた。Neckが小さい side-wall type の嚢状動脈瘤であり、かつ動脈瘤内に動静脈瘻が存在していることから、母血管を温存した瘤内塞栓術で根治が可能と判断した。根治が得られなければ母血管閉塞を選択する方針で、遠位から近位の順番で動脈瘤内の塞栓を行うこととした。母血管を温存する方針であり、内頸動脈と外頸動脈との間の側副血行路の確認は行わず、早期の治療が望ましいため検査に引き続き緊急で治療を行った。

**血管内治療：**局所麻酔下に右大腿動脈より 6Fr Envoy (Codman & Shurtleff, Johnson & Johnson, Raynham, MA, USA) を左外頸動脈に誘導した。まず、遠位側の顔面横動脈の動脈瘤内に Transit2 (Cordis, Johnson & Johnson, Fremont, CA, USA) を誘導した。マイクロカテーテルから造影剤を注入して、動静脈瘻がないことを確認した。Orbit Galaxy Complex Fill 5 mm×15 cm (Codman & Shurtleff, Johnson & Johnson) 1本, Orbit Galaxy Complex Fill 5 mm×10 cm 2本で framing を行い、合計 14本, 105cmのコイルを使用して瘤内塞栓術を行った。塞栓後の血管撮影では、顔面横動脈は温存された状態で動脈瘤の完全閉塞が得られた。次に近位側の外頸動脈本幹の動脈瘤内に Transit2 を誘導した。マイクロカテーテルから造影剤を注入すると、3D回転血管撮影の所見と同様に、動脈瘤内に動静脈瘻の存在が確認できた。Orbit Galaxy Complex Fill 8 mm×24 cm 3本で framing を行った。Neck近傍に動静脈瘻があるため、合計 9本, 152cmのコイルを使用して、neck近傍まで可能な限り密な瘤内塞栓術を行った。塞栓後の血管撮影では、外頸動脈本幹は温存された状態で動脈瘤と動静脈瘻の完全閉塞が得

られた (Fig. 3, 4A, B). 術直後より左頬部の動脈性の拍動は消失し、左頬部の腫脹は徐々に軽快した。治療 1 ヶ月後に行った血管撮影では、外頸動脈本幹の動脈瘤と動静脈瘻は完全に閉塞している状態であった。顔面横動脈の動脈瘤の neck 部分にわずかに再開通を認めていたが (Fig. 4C), 治療から 1 ヶ月経過し、偽性動脈瘤壁および周囲を形成している軟部組織は器質化しており、動脈瘤の増大および破裂の危険性は低いと考えられた。また、顔面横動脈の動脈瘤は未破裂と考えられたので経過観察を行うこととした。以降は、単純撮影でコイルの形状を確認しており、コイル形状の変化は認めず、治療 1 年後の時点では、左頬部腫脹や動脈性の拍動の再発は認めていない。

## 考察

偽性動脈瘤と動静脈瘻はともに血管外傷により発生し得るが、これらの病態は全く異なると考えられている。本症例では、下顎矯正手術の際に外頸動脈の血管壁を損傷したと思われ、その損傷部位は不明確であり縫合や凝固などの止血処置は行われなかった。おそらく術直後の左頬部腫脹の際に、血液がその損傷部から血管外に漏出することで血腫を形成し、出血した損傷部に仮性被膜が形成され、血流の圧力で増大して偽性動脈瘤となったと思われる<sup>14</sup>。下顎矯正手術 3 日目に、外頸動脈本幹の偽性動脈瘤が破裂し、左頬部腫脹が増悪し、更に口腔内への出血を認めた。破裂した際に、偽性動脈瘤から網目状に広がる pterygoid venous plexus への血流の交通ができて動静脈瘻が形成され、本症例では、この動静脈瘻の影響で腫脹部の動脈性の拍動が出現したと思われる。

偽性動脈瘤に対する治療としては、保存的加療、用手もしくはエコーガイド下での圧迫、経皮的トロンビン注入、血管内治療による塞栓術、外科的切除が挙げられる<sup>4</sup>。外傷性の偽性動脈瘤と動静脈瘻は共に 80%以上の自然閉塞率が

報告されており、動脈瘤が比較的小さく、増大傾向がなく、無症候性の病変に対しては保存的加療が第一選択になると思われる<sup>7</sup>。また、本症例のように外傷により偽性動脈瘤と動静脈瘻が同時に発生した症例においても、自然閉塞した症例が報告されている<sup>12</sup>。しかし、自然閉塞の経過観察中にいくつかの合併症が発生する危険性が報告されている。Wangらは、偽性動脈瘤が徐々に大きくなることで機能障害を来し、最終的には動脈瘤が破裂して口腔内出血や鼻出血を引き起こす可能性があることを指摘している<sup>4</sup>。また、偽性動脈瘤は隣接する静脈を圧迫することで病変部からの静脈灌流を阻害して、血栓症や遠位塞栓を引き起こすともいわれている<sup>15</sup>。一方、外傷性の動静脈瘻では、経時的に二次性の新たな流入血管が発生し、当初は見えていない外頸動脈系の吻合ネットワークが開いてくる可能性があると考えられている<sup>16</sup>。本症例のように外傷性の偽性動脈瘤と動静脈瘻は病状の進行が急速であり<sup>10</sup>、経過観察中に上記のように病態が複雑になり治療が困難となる可能性があるため、手術加療を行う場合はできるだけ早期の治療が推奨されている<sup>10,16</sup>。

近年では、外頸動脈本幹とその分枝血管に発生した偽性動脈瘤や動静脈瘻に対する根治的治療は、血管内治療による病変部を含んだ母血管閉塞が選択されることが多くなっている<sup>4,17</sup>。しかし、病変部の近位側のみの母血管閉塞では、側副血行路からの逆行性血流による再発や出血の危険があるため注意が必要である<sup>13</sup>。血管内治療は、深部病変にも即座に到達可能で、低侵襲で、かつ顔面に傷ができないため美容的にも優れており、外科的治療より有用であるとの報告もある<sup>4</sup>。実際、本症例のように外頸動脈に形成される偽性動脈瘤は比較的細い分枝血管に発生し側副血行路も存在するため、母血管閉塞が可能であることが多い<sup>4</sup>。しかし、コイル以外の塞栓物質で母血管閉塞を行う際には、外頸動脈と内頸動脈との間の吻合を確認する必要がある<sup>18</sup>、本症例では若年者であり

外頸動脈本幹閉塞の長期的予後は不明で、かつ下顎矯正手術から4日しか経過しておらず創傷治癒の観点からも、母血管の温存が望ましいと考えて瘤内塞栓術を行った。通常は、偽性動脈瘤の neck は dome に比較してかなり小さいため<sup>10</sup>、瘤内塞栓術に適した形状をしていると思われる。また、一般的に外傷性の動静脈瘻の交通は1ヶ所のみであり<sup>10</sup>、瘻孔のみの超選択的な塞栓術が可能である。本症例の3D回転血管撮影の所見では、偽性動脈瘤は neck が小さな嚢状であるため瘤内塞栓術に適した形状であり、更に動静脈瘻は偽性動脈瘤の neck 近傍に存在する1ヶ所のみであり、瘤内塞栓術のみで根治の可能性があると判断した。偽性動脈瘤周囲の組織は、急性期は脆弱な血腫や軟部組織であり、瘤内塞栓術後には再出血の危険が残存しており、綿密な経過観察が必要と思われる。慢性期には偽性動脈瘤周囲の軟部組織は器質化しており、動脈瘤の増大および破裂の危険はほぼ消失したと思われた。

動静脈瘻を伴う大きな偽性動脈瘤の瘤内塞栓術は、脆弱な瘤壁の断裂により重篤な出血を引き起こすかもしれない<sup>4</sup>。また、偽性動脈瘤が皮膚や粘膜面に近ければ、瘤内にコイルが充填されることで長期的にはコイルの突出が起る可能性がある<sup>19</sup>。そのため、外頸動脈に発生する偽性動脈瘤に対して瘤内塞栓術を行う場合には、病変部が皮膚や粘膜面から離れている方が適していると思われる。本症例の偽性動脈瘤は、皮膚や口腔内の粘膜面から離れているため、コイルによる瘤内塞栓術が適していると判断した。顔面動脈に発生した破裂偽性動脈瘤に対して瘤内塞栓術を行い、再出血を予防し得た症例の報告は存在するが<sup>19</sup>、我々が渉猟する限りでは、動静脈瘻を伴う外傷性偽性外頸動脈瘤に対して瘤内塞栓術により再破裂を予防し得た症例は報告されていない。瘤内塞栓術は、外頸動脈と内頸動脈との間の吻合評価が不要であり、緊急で局所麻酔下に比較的容易に施行することが可能である。母血管の温存が望ましい症



例で、病変部が皮膚や粘膜面から離れていれば瘤内塞栓術が再破裂の予防処置として有用であると考えられた。

## 結語

下顎矯正手術4日後に動静脈瘻を伴う外傷性偽性外頸動脈瘤を有する非常に稀な症例に対して、瘤内塞栓術により再破裂を予防し得た症例を経験した。母血管の温存が望ましい動静脈瘻を伴う外頸動脈の偽性動脈瘤に対して、病変部が皮膚や粘膜面から離れていれば瘤内塞栓術が再破裂の予防処置として有用であると考えられた。

## 利益相反開示

共著者坂井信幸は、テルモから研究資金の援助を受け、大塚製薬、Johnson & Johnson, Stryker, テルモから講演料等の謝金を受けている。その他の筆頭著者および共著者に利益相反はない。

## 文献

1. Inamasu J, Guiot BH. Iatrogenic vertebral artery injury. *Acta Neuro Scand* 2005; 112: 349-357.
2. Rich NM, Hobson RW 2nd, Collins GJ Jr. Traumatic arteriovenous fistulas and false aneurysms: a review of 558 lesions. *Surgery* 1975; 78: 817-828.
3. Davidovic LB, Banzic I, Rich N, et al. False traumatic aneurysms and arteriovenous fistulas: retrospective analysis. *World J Surg* 2011; 35: 1378-1386.
4. Wang D, Su L, Han Y, et al. Embolization treatment of pseudoaneurysms originating from the external carotid artery. *J Vasc Surg* 2015; 61: 920-926.

5. Cox MW, Whittaker DR, Martinez C, et al. Traumatic pseudoaneurysms of the head and neck: early endovascular intervention. *J Vasc Surg* 2007; 46: 1227-1233.
6. Avelar RL, Goelzer JG, Becker OE, et al. Embolization of pseudoaneurysm of the internal maxillary artery after orthognathic surgery. *J Craniofac Surg* 2010; 21: 1764-1768.
7. Toursarkissian B, Allen BT, Petrinesc D, et al. Spontaneous closure of selected iatrogenic pseudoaneurysms and arteriovenous fistulae. *J Vasc Surg* 1997; 25: 803-808.
8. Anami H, Aihara Y, Kawashima A, et al. A case report of a pediatric traumatic aneurysm with arteriovenous (A-V) fistula CASE-BASED UPDATE. *Childs Nerv Syst* 2014; 30: 2003-2008.
9. Goksu E, Yuruktumen A, Kaya H. Traumatic pseudoaneurysm and arteriovenous fistula detected by bedside ultrasound. *J Emerg Med* 2014; 46: 667-669.
10. Erkut B, Karapolat S, Kaygin MA, et al. Surgical treatment of post-traumatic pseudoaneurysm and arteriovenous fistula due to gunshot injury. *Ulus Travma Acil Cerrahi Derg* 2007; 13: 248-250.
11. Rathod JR, Dhomne S, Taori K, et al. Endovascular stent graft for post-traumatic superficial femoral artery pseudoaneurysms with arteriovenous fistula: 6 months follow-up of 2 cases. *J Radiol Case Rep* 2011; 5: 26-34.
12. Al-Said AN, Al-Hajry F. Spontaneous resolution of blunt trauma renal artery pseudoaneurysm and reno-caval fistula. *J Trauma* 2009; 66: E67-69.
13. Ko JH, Kim YJ. Traumatic pseudoaneurysm of the middle meningeal artery

with an arteriovenous fistula on a non-fractured site. *Interv Neuroradiol* 2014; 20: 352-356.

14. Rubio-Palau J, Ferrer-Fuertes A, Garcia-Diez E, et al. Traumatic pseudoaneurysm of the superficial temporal artery: case report and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2014; 117: e112-114.

15. Silva AC, O'Ryan F, Beckley ML, et al. Pseudoaneurysm of a branch of the maxillary artery following mandibular sagittal split ramus osteotomy: case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2007; 65: 1807-1816.

16. Sacho RH, Kryshtalskyj B, Krings T. Arteriovenous fistula of the middle meningeal artery--a rare complication after arthroscopic temporomandibular joint surgery readily amenable to endovascular treatment. *J Oral Maxillofac Surg* 2014; 72: 1258-1265.

17. Herrera DA, Vargas SA, Dublin AB. Endovascular treatment of penetrating traumatic injuries of the extracranial carotid artery. *J Vasc Interv Radiol* 2011; 22: 28-33.

18. Geibprasert S, Pongpech S, Armstrong D, et al. Dangerous extracranial-intracranial anastomoses and supply to the cranial nerves: vessels the neurointerventionalist needs to know. *AJNR Am J Neuroradiol* 2009; 30: 1459-1468.

19. Hetts SW, Mong S, Sincic R, et al. Delayed transcuteaneous extrusion of embolic coils after embolization of facial artery pseudoaneurysm. *Interv Neuroradiol* 2012; 18: 353-357.

## 図・表の説明

**Fig. 1.** Preoperative left external carotid angiogram shows two aneurysms and an arteriovenous fistula. (A: anteroposterior view; B: lateral view)

**Fig. 2.** Preoperative 3D rotational angiogram shows two aneurysms and an arteriovenous fistula (arrow). (A: working angle view; B: right posterior oblique view)

**Fig. 3.** Postoperative left external carotid angiogram shows complete obliteration of the aneurysms and the arteriovenous fistula. (A: anteroposterior view; B: lateral view)

### **Fig. 4.**

**A:** Preoperative left external carotid angiogram at the working angle shows two aneurysms and an arteriovenous fistula.

**B:** Left external carotid angiogram at the working angle just after the embolization shows complete obliteration of the aneurysms and the arteriovenous fistula.

**C:** Left external carotid angiogram at the working angle 1 month after the embolization shows slight neck remnant of the aneurysm originating from the transverse facial artery and complete obliteration of the aneurysm originating from external carotid artery trunk without recurrence of the arteriovenous fistula.

Fig.1

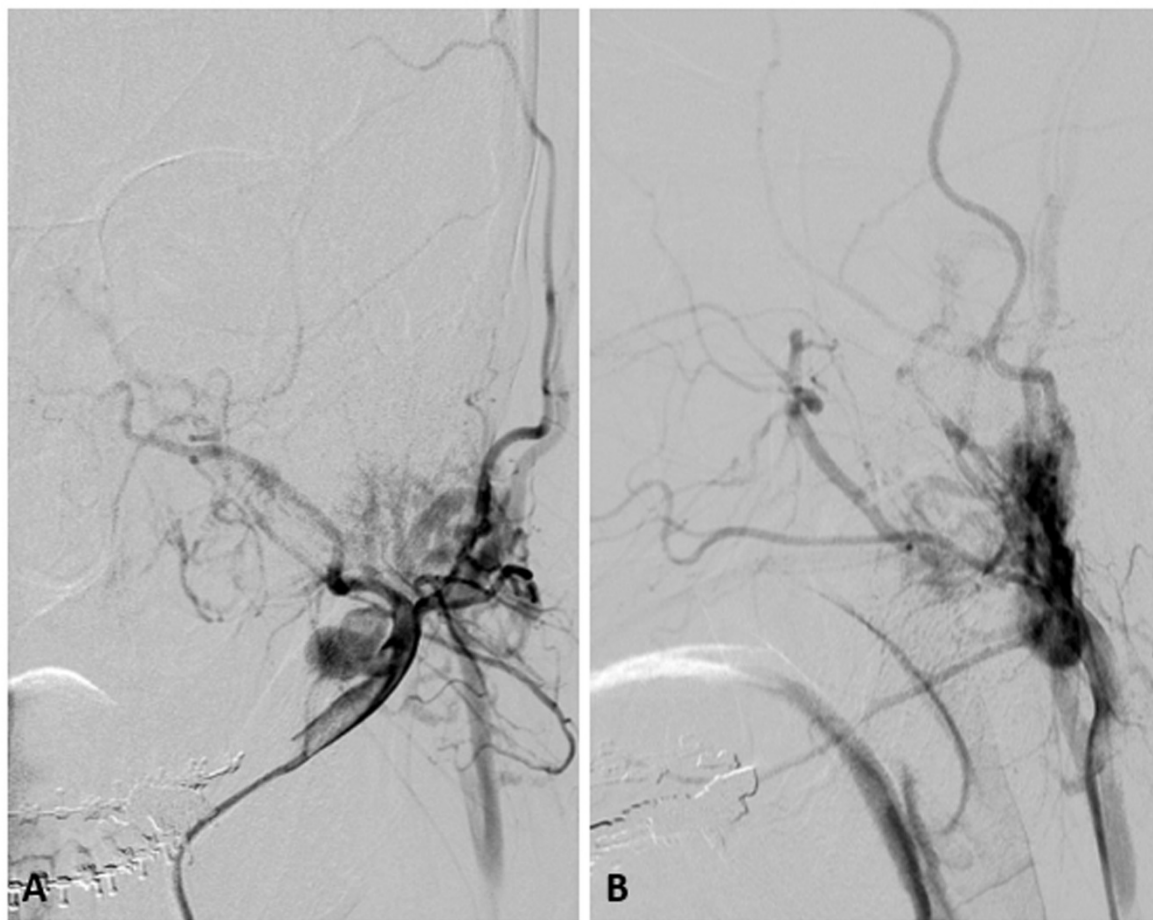


Fig.2

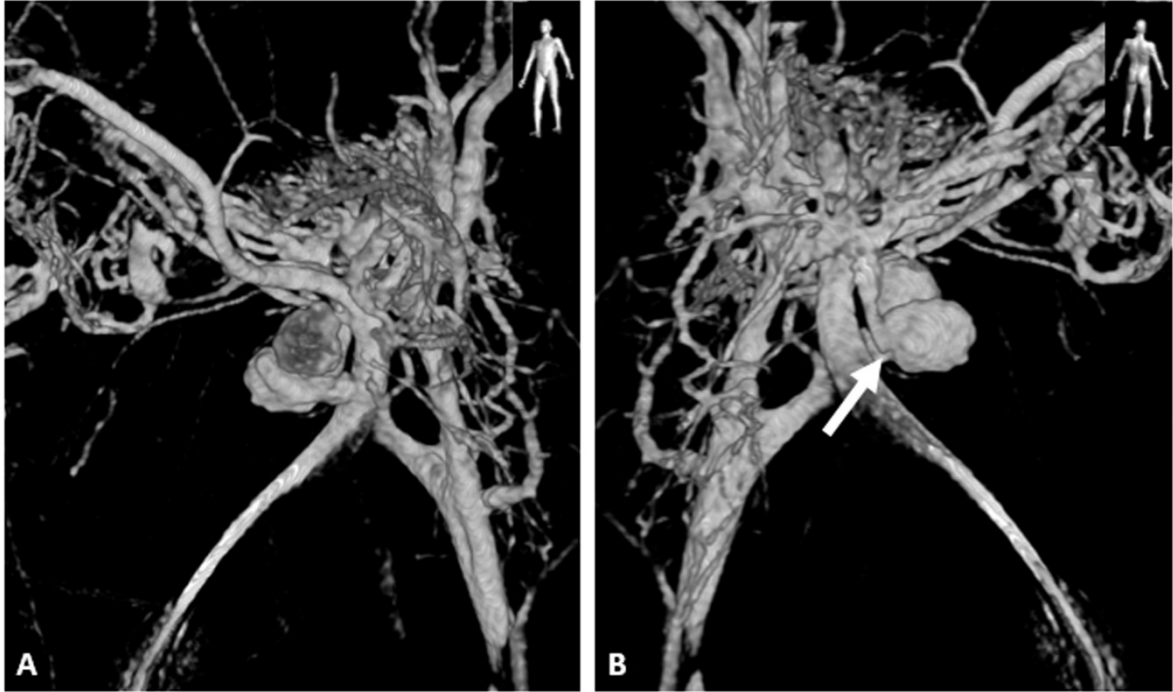


Fig.3

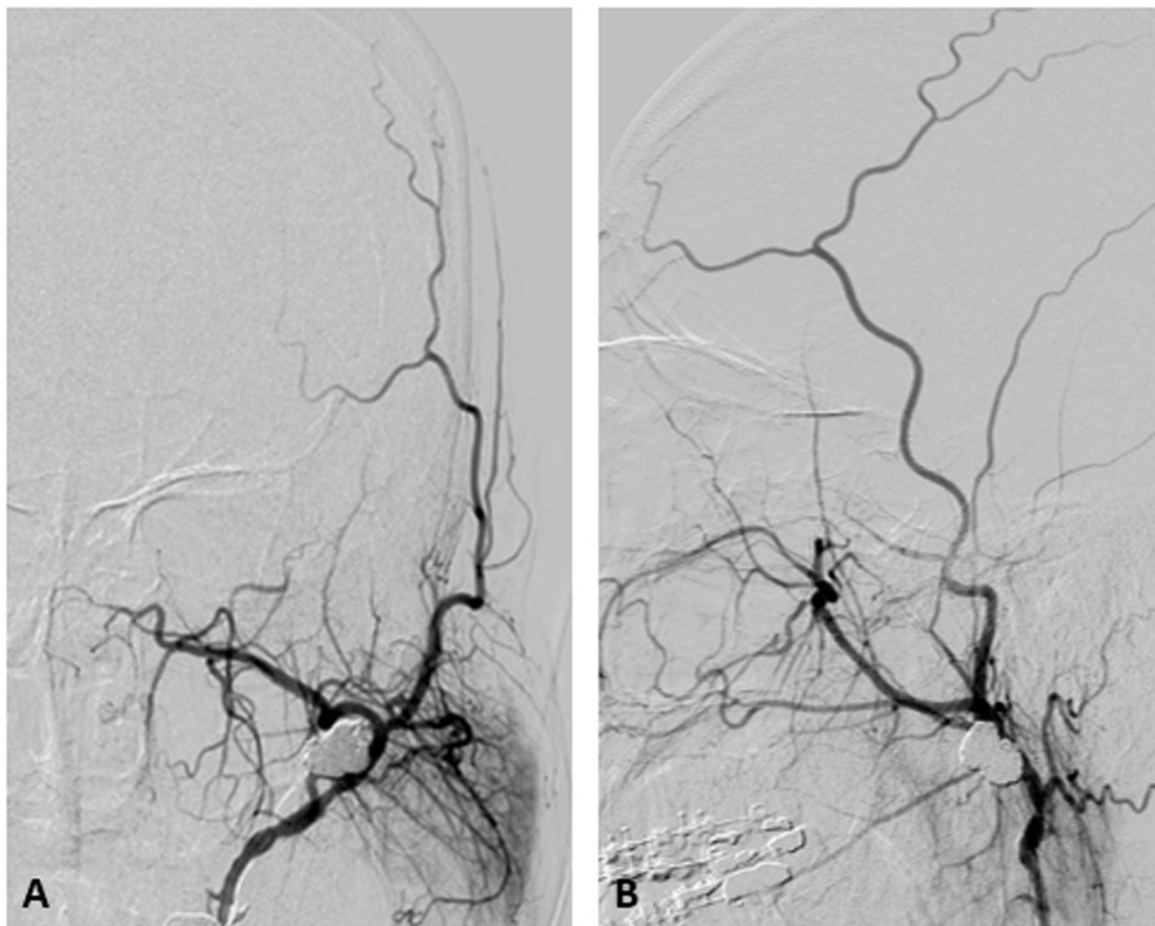


Fig.4

