

論文種別：症例報告

論文タイトル：もやもや病に合併した脳底動脈分岐部動脈瘤の治療方針—バイパス術とステント併用コイル塞栓術により治療した一例—

著者名：菊池隆幸 安部倉友 新井大輔 池田宏之 舟木健史 石井暁 吉田和道 高木康志 宮本享

所属施設：京都大学大学院医学研究科 脳病態生理学講座 脳神経外科

連絡著者：菊池隆幸

連絡著者住所：606-8507 京都市左京区聖護院川原町54 京都大学大学院医学研究科脳神経外科

連絡著者連絡先：TEL 075-751-3459 FAX 075-752-9501

連絡著者アドレス：tkik@kuhp.kyoto-u.ac.jp

キーワード：

もやもや病 ステント併用コイル塞栓術 側副血行路 抗血小板療法

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いたします。

1 和文要旨

2 目的：片側性もやもや病に併発した脳底動脈分岐部動脈瘤に対しバイパス術後に
3 ステント併用コイル塞栓術を行った症例を報告する。

4 症例：41 歳男性。左片側性もやもや病にともない脳底動脈分岐部動脈瘤を指摘さ
5 れたが、増大傾向にあり治療を行った。左中大脳動脈領域の血流予備能低下を認
6 め、左後大脳動脈が側副血行路となっていた。まず左浅側頭動脈－中大脳動脈吻
7 合術を行い、間隔をおいてステント併用コイル塞栓術を行った。Dome filling に
8 終わったが 1 年後の DSA で動脈瘤は閉塞傾向を示していた。

9 結論：もやもや病に併発する主幹動脈瘤に対し、特徴的な側副血行を考慮しバイ
10 パス術やステントを用いることで効果的に塞栓術を行える可能性がある。

11 (295/300)

12

1 緒言

2 もやもや病では両側内頸動脈終末部の狭窄・閉塞に伴い、中大脳動脈領域や前大
3 脳動脈領域への側副血行路として椎骨脳底動脈系が発達するため、椎骨脳底動
4 脈系の動脈瘤を合併しやすいとされている¹⁻⁶。また、側副血行路となる側脳室周
5 囲の髄質動脈や脈絡叢動脈も著しく拡張して動脈瘤を形成し、破綻すると実質内
6 出血や脳室内出血をきたす。JAM trial は出血性もやもや病に対して浅側頭動脈
7 -中大脳動脈吻合術がもやもや病による出血の二次予防に効果があること報告し
8 ているが、この研究は異常な側副血行路からの出血を主に想定していると考えら
9 れる⁷。もやもや病に伴って主幹脳動脈に発生する動脈瘤を治療するにあたり、も
10 やもや病に特徴的な血流負荷の影響を検討した報告は殆どない^{4,8-11}。今回我々
11 は、もやもや病に合併し増大傾向を示した未破裂脳底動脈分岐部動脈瘤に対し、
12 浅側頭動脈-中大脳動脈吻合術を行った後、待機的にステント併用コイル塞栓術を
13 行った症例を経験したので、治療戦略について文献的考察を交えて報告する。

14

15 症例提示

16 病歴

17 41歳男性。特別な既往なし。父親がもやもや病にて近医にて経過観察中。小児期
18 に一過性脳虚血発作があったが、その後は起こらなくなった。成人後、再度一過性
19 脳虚血発作をきたすようになり、左片側性もやもや病を指摘された。成人後の虚血
20 症状出現時は当時十二指腸潰瘍による貧血を併発しており、貧血の是正とともに
21 症状も消失した。

22 2011年の安静時・アセタゾラミド負荷脳血流検査では、安静時の血流は保たれて
23 いる一方で血管反応性は低下しており、同領域はPower's stage I相当と判断

1 された。明らかな症候や MRI 上の出血性、虚血性病変の指摘はなく、経過観察さ
2 れていた。この時点では MRA ではっきりとした動脈瘤は認められていなかった。
3 2014 年の MRA で脳底動脈分岐部動脈瘤を指摘された。本人の転居に伴い当科
4 に紹介となった。

5

6 検査所見

7 DSA では外頸動脈から眼動脈を介して僅かに頭蓋内内頸動脈の近位部が描出
8 され、前脈絡叢動脈が中大脳動脈領域への側副血行路として発達し、内頸動
9 脈終末部は閉塞していた。MRI heavy T2 image で対側と比較して内頸動脈
10 の外径が狭小化していた。動脈硬化の素因もないことから家族歴も考慮し、
11 片側性もやもや病と診断した。椎骨動脈造影では、脳底動脈先端部に不整形で
12 ネット 6.47mm、高さ 3.00mm、ドーム最大径 5.78mm の動脈瘤を認めた
13 (Figure 1)。左内頸動脈は閉塞、左外頸動脈からの頭蓋内への還流もわずかで
14 あった。123I-IMP SPECT では、左中大脳動脈領域の安静時血流は保たれてい
15 たが、アセタゾラミド負荷にて 2%程度と反応性低下を認めていた(Figure 2A)。

16

17 脳底動脈先端部動脈瘤は増大傾向が確認されており、治療適応と判断した。動脈
18 瘤は後方循環に位置しておりコイル塞栓術による治療を第一に考え、wide neck
19 かつ不整形で ASPECT 比(ドーム高さ/ネック幅)が 0.46 と低いことからステ
20 ントの併用が必要と考えられた。左中大脳動脈領域は Power's stage I 相当の血
21 流不全と考えられたが、左後大脳動脈は左中大脳動脈領域へのほぼ唯一の側副
22 血行路となっており、脳底動脈および左後大脳動脈への血流負荷が動脈瘤増大の
23 一因と考えられた(Figure 2A)。このためまず左浅側頭動脈-中大脳動脈吻合術
24 を行い、血流負荷の軽減を図った後に動脈瘤に対する血管内治療を行う方針とし

1 た。患者には、バイパス術が動脈瘤に対する血管内治療効果を高めるかどうか
2 ついては現時点では不明であることも含めて十分説明し、同時を得たうえで一連の
3 治療を行った。

4

5 左浅側頭動脈-中大脳動脈吻合術

6 プロポフォールによる全身麻酔下に左浅側頭動脈頭頂枝を中心溝動脈に端側吻合
7 した。術中は動脈血中の二酸化炭素濃度管理を厳密に行った。術後特に問題なく
8 12日後に退院した。

9

10 ステント併用コイル塞栓術

11 浅側頭動脈-中大脳動脈吻合術の3ヶ月後に行った。治療に先立ち、MRIと
12 123I-IMP SPECT（安静時・アセタゾラミド負荷時）を行い、新規の出血性及び虚
13 血性病変なく、脳血流にも血管内治療の妨げとなるような所見がないことを確認し
14 た。治療の1週間前からアスピリン 100mg、クロピドグレル 75mg の投与を開始
15 した（術前日 VerifyNow [Accriva diagnostics, San Diego, CA, USA]測
16 定結果：ARU 375, PRU 83）。治療は全身麻酔で行った。まず DSA を行い、浅
17 側頭動脈-中大脳動脈吻合術の開存を確認、椎骨動脈造影での左中大脳動脈領
18 域への軟髄膜吻合が減少していることを確認した（Figure 2B）。Enterprise 2
19 （Codman Neurovascular, Raynham, MA, USA）を左後大脳動脈から脳底動
20 脈にかけて展開後、jailing technique で塞栓術を行ったが、右 P1 にコイルが
21 逸脱するためこちらに Transform C （Stryker, Kalamazoo, MI, USA）を
22 trans-cell に誘導し、バルーンアシストも併用しつつ最終的には trans-cell で
23 Target coil （Stryker, Kalamazoo, MI, USA）を用いて塞栓術を行った
24 （Target 360 soft 4mmx8cm（回収）, Target 360 soft

1 3.5mmx10cm, Target helical ultrasoft 2.5mmx4cm, 2mmx3cm,
2 2mmx2cm)。ステントやバルーンを併用してもフレームの形成が困難で、最終的に
3 は dome filling の状態で手技を終了した(Figure 3 Post)。術後新規症状なく、
4 治療一週間後に退院となった。

5

6 術後検査及び抗血小板療法

7 半年後の time-of-flight MRA では、術直後に認められていた dome 内の血流
8 信号が減少していた。一年後の椎骨動脈造影では、左後大脳動脈にかかる遠位ネ
9 ック部分に存在する小さな膨隆が残存するものの、瘤の大部分は血栓化が進行し
10 てほぼ完全閉塞の状態となっていた(Figure 3 1Y FU)。左総頸動脈造影では、
11 バイパスをはじめとした外頸動脈からの頭蓋内への血流は治療時と比べてさらに
12 増加、椎骨動脈造影における灌流範囲も治療時より縮小していた(Figure 2 C)。
13 治療半年後にアスピリン 100mg 単独とし、現在も継続している。もやもや病に伴う
14 出血リスクも有るため、通常の当施設でのステント併用コイル塞栓術後のプロトコ
15 ルに基づき、治療後 2 年をめどに抗血小板療法を終了する予定である。

16

17 考察

18 今回我々は、もやもや病に併発した脳底動脈分岐部動脈瘤に対し、浅側頭動脈－
19 中大脳動脈吻合術を先行して行い、その後待機的にステント併用コイル塞栓術に
20 よる治療を行った。この治療戦略は、もやもや病の病態と主幹動脈に発生した動脈
21 瘤の血流動態の観点から非常に示唆に富むものであると考える。なお、本考察で
22 は、微細な側副血行路に生じる小動脈瘤と、主幹動脈に生じる動脈瘤とを区別し、
23 後者について議論する。

24 1. 浅側頭動脈－中大脳動脈吻合術の意義

1 現時点では、分岐部動脈瘤の末梢にごく軽度の血流不全が存在する状態で、事前
2 にバイパス術を行うことにより動脈瘤に対する血管内治療の効果が高まるかどうか
3 は不明である。しかしながら、本症例では左後大脳動脈からの軟髄膜吻合と外側
4 後脈絡叢動脈を介した吻合がほぼ唯一の左中大脳動脈領域への側副血行の経路
5 となっていた。また、Power's stage Iに相当する血流不全を左中大脳動脈領域
6 に認めており、脳底動脈—後大脳動脈系への高い負荷が想定された。血管分岐部
7 にかかる血流負荷と動脈瘤形成や破裂、治療後再増大との関係は以前から示唆さ
8 れており¹²⁻¹⁴、本症例の動脈瘤形成・増大にも血流負荷が関与していると考えら
9 れた。

10 通常、成人もやや病であきらかな虚血症状が無く、Power's stage I程度の血
11 流不全であれば経過観察とすることが多い。本症例では浅側頭動脈—中大脳動脈
12 吻合術を血管内治療に先行させた理由には、バイパス術を行うことで上に述べた
13 動脈瘤への血流負荷を軽減し、今後控えている血管内治療の効果を高める可能性
14 があると考えたことがある。血流負荷の軽減による動脈瘤の縮小、消退は、もやも
15 や病の微細な側副血行路に形成される小動脈瘤や^{15,16}、動静脈奇形の流入血管
16 に形成される動脈瘤が原疾患の治療後に消退するという報告や^{17,18}、部分血栓化
17 巨大動脈瘤における外科的血流変更治療などでの効果が報告されている¹⁹。本症
18 例では、負荷SPECT結果は経時的にほとんど変化を認めなかったが、DSAでは
19 経時的にバイパス灌流範囲が広がり、それにつれて椎骨動脈造影での灌流範囲
20 が減少していることから、血管反応性を改善するまでには至らなかったものの血流
21 分布が変わることで動脈瘤への負担が軽減された可能性があると考えている。

22

23 2. ステント併用の意義

1 本症例の動脈瘤は、非常にワイドネックで ASPECT 比も低く、動脈瘤塞栓術には
2 もともとステントの併用が必要と考えられた。コイルの逸脱を防ぐという観点でのア
3 シストが第一の使用目的であるが、ステントを使用することで僅かに親血管の走行
4 が変化しており、これも動脈瘤が徐々に閉塞傾向となったことに寄与した可能性が
5 ある。本症例でも、治療直後には脳底動脈—左後大脳動脈の角度が変化してい
6 た。以前我々は、ステント留置による親血管の直線化がコイル塞栓術後の動脈瘤
7 再開通を抑制する効果について報告したが²⁰、同様に親血管の直線化が不完全
8 塞栓に終わった動脈瘤の血栓化促進に寄与するかについては今後の検討を要す
9 る。

10 本症例では血管径と走行の状態から、左後大脳動脈への留置とした。左右後大脳
11 動脈のどちらにステントを留置するかにより角度変化とその動脈瘤への影響が異
12 なってくる可能性はあるが、側副血行の供給源となっている血管がより広径で角度
13 もついていると考えられ、この走行を変化させる意味ではやはり左後大脳動脈へ
14 の留置が適切であったと考えられる。

15

16 3. 抗血小板剤管理と介入タイミング

17 ステント併用コイル塞栓術を行うにあたり、術前からの抗血小板療法が必須とな
18 り、また術後も長期間の継続が必要となる。本症例では、上記の動脈瘤に対する
19 治療効果という側面以外にも、動脈瘤の血管内治療を先行させた場合、バイパス
20 術施行は二剤併用抗血小板療法中を避けることが望ましく、時期をかなり後にせざ
21 るをえなくなるため、バイパス術を先行させた。

22

23 4. 介入の順序

24 本症例では、出血リスクへの配慮と、バイパス術による血行力学的ストレスのコン

1 トロールが本症例の動脈瘤治療に効果が見込めると考えたことから、バイパス術を
2 先行させ、その後待機的にステント併用コイル塞栓術を行った。ただし、バイパス
3 術の動脈瘤治療に対する効果は間接的で確実とはいえないため、介入の順序やタ
4 イミングを検討する際には周術期リスクについて十二分に考慮する必要がある。さ
5 きにステント併用コイル塞栓術を行い、動脈瘤の血栓化が認められない、もしくは
6 動脈瘤の再開通・再増大が認められた時点でバイパス術を計画する選択肢が存在
7 する。これは動脈瘤に対して直接的な治療である塞栓術を優先して行えるという利
8 点がある。この戦略の場合、動脈瘤の閉塞傾向が認められない場合や再開通・再
9 増大がみられた場合、動脈瘤の再治療も必要な状態と考えられ、改めてバイパス
10 術と動脈瘤根治術の適応、順序、タイミングについて検討することになる。もう一つ
11 の選択肢として、初回の動脈瘤に対する血管内治療後、抗血小板剤の問題がなく
12 なり次第可及的速やかにバイパス術を行うことも考えられるが、動脈瘤への血流
13 負荷の影響と安全性を考慮してバイパス術を先行させた。

14

15

16 バイパス術とステント併用コイル塞栓術の間のインターバルについては、当施設の
17 もやもや病術後検査のプロトコルに準じて3ヶ月後とした。バイパス術後に血流が
18 安定し、脳底動脈—後大脳動脈への血流依存を低減する効果を十分に得ようとし
19 たこと、抗血栓療法にともなう開頭術後の出血リスクを減じることが主な理由であ
20 る。前者に関しては実際に血管内治療1年後のDSAでバイパス灌流範囲の拡
21 大が認められている(Figure 2C)が、より短いインターバルで血管内治療
22 を行っても効果面で変わりは無かった可能性はある。

23

24

1 結論

2 もやもや病の側副血行路となっている脳底動脈分岐部に発生した増大傾向を示す
3 動脈瘤に対して、バイパス術を行い、その後待機的にステント併用コイル塞栓術を
4 行った症例を報告した。もやもや病に伴う主幹動脈の動脈瘤は、特徴的な側副血
5 行路の発達による血流負荷が瘤の発生に関わっており、血流負荷に対するバイパ
6 ス手術と、破裂予防としての塞栓術の両治療が必要と考えた。報告症例では塞栓
7 術にステントの併用が必要であり抗血小板剤を投与するため、バイパス手術を先
8 行する方が安全性が高いと判断した。もやもや病特有の病態を念頭に置きバイパ
9 ス術やステント併用も考慮することで、動脈瘤の治療も効果的に行える可能性があ
10 ると考えられた。

11

12 利益相反開示

13 筆頭著者および共著者全員が利益相反はありません。

14

1 文献

- 2 1) Yabumoto M, Funahashi K, Fujii T, et al. Moyamoya disease
3 associated with intracranial aneurysms. Surg Neurol.
4 1983;20:20-24.
- 5 2) Adams HP, Kassell NF, Wisoff HS, et al. Intracranial saccular
6 aneurysm and moyamoya disease. Stroke. 1979;10:174-179.
- 7 3) Waga S, Tochio H. Intracranial aneurysm associated with
8 moyamoya disease in childhood. Surg Neurol. 1985;23:237-243.
- 9 4) Kagawa K, Ezura M, Shirane R, et al. Intraaneurysmal
10 embolization of an unruptured basilar tip aneurysm associated
11 with moyamoya disease. J Clin Neurosci. 2001;8:462-464.
- 12 5) Iwama T, Todaka T, Hashimoto N. Direct surgery for major
13 artery aneurysm associated with moyamoya disease. Clin
14 Neurol Neurosurg. 1997;99 Suppl 2:S191-3.
- 15 6) Konishi Y, Kadowaki C, Hara M, et al. Aneurysms associated
16 with moyamoya disease. Neurosurgery. 1985;16:484-491.
- 17 7) Miyamoto S, Yoshimoto T, Hashimoto N, et al. Effects of
18 Extracranial-Intracranial Bypass for Patients With
19 Hemorrhagic Moyamoya Disease. Stroke. 2014;45.
- 20 8) Jiang H, Ni W, Lei Y, et al. Combined extracranial-intracranial
21 bypass surgery with stent-assisted coil embolization for
22 moyamoya disease with a ruptured wide-necked basilar trunk
23 aneurysm: a case report. Turk Neurosurg. 2015;25:180-185.

- 1 9) Zhang L, Xu K, Zhang Y, et al. Treatment strategies for
2 aneurysms associated with moyamoya disease. *Int J Med Sci.*
3 2015;12:234-242.
- 4 10) Chen Y, Dai D, Fang Y, et al. Endovascular Treatment of
5 Ruptured Large or Wide-Neck Basilar Tip Aneurysms
6 Associated with Moyamoya Disease Using the Stent-Assisted
7 Coil Technique. *J Stroke Cerebrovasc Dis.* 2015;24:2229-2235.
- 8 11) Irie K, Kawanishi M, Nagao S. Endovascular treatment of
9 basilar tip aneurysm associated with moyamoya disease--case
10 report. *Neurol Med Chir (Tokyo).* 2000;40:515-518.
- 11 12) Stapleton CJ, Kumar JI, Walcott BP, et al. The effect of
12 basilar artery bifurcation angle on rates of initial occlusion,
13 recanalization, and retreatment of basilar artery apex
14 aneurysms following coil embolization. *Interv Neuroradiol.*
15 2016;22:389-395.
- 16 13) Sugiyama S-I, Niizuma K, Sato K, et al. Blood Flow Into
17 Basilar Tip Aneurysms: A Predictor for Recanalization After
18 Coil Embolization. *Stroke.* 2016;47:2541-2547.
- 19 14) Can A, Du R. Association of Hemodynamic Factors With
20 Intracranial Aneurysm Formation and Rupture: Systematic
21 Review and Meta-analysis. *Neurosurgery.* 2016;78:510-520.
- 22 15) Amin-Hanjani S, Goodin S, Charbel F, et al. Resolution of
23 bilateral moyamoya associated collateral vessel aneurysms:

1 Rationale for endovascular versus surgical intervention. Surg
2 Neurol Int. 2014;5:155.

3 16) Ni W, Xu F, Xu B, et al. Disappearance of aneurysms
4 associated with moyamoya disease after STA-MCA
5 anastomosis with encephaloduro myosynangiosis. J Clin
6 Neurosci. 2012;19:485-487.

7 17) Joerg Meisel H, Mansmann U, Alvarez H, et al. Cerebral
8 arteriovenous malformations and associated aneurysms:
9 Analysis of 305 cases from a series of 662 patients.
10 Neurosurgery. 2000;46:793-802.

11 18) Platz J, Berkefeld J, Singer OC, et al. Frequency, risk of
12 hemorrhage and treatment considerations for cerebral
13 arteriovenous malformations with associated aneurysms. Acta
14 Neurochir (Wien). 2014;156:2025-2034.

15 19) Miyamoto S, Funaki T, Iihara K, et al. Successful obliteration
16 and shrinkage of giant partially thrombosed basilar artery
17 aneurysms through a tailored flow reduction strategy with
18 bypass surgery. J Neurosurg. 2011;114:1028-1036.

19 20) Ishii A, Chihara H, Kikuchi T, et al. Contribution of the
20 straightening effect of the parent artery to decreased
21 recanalization in stent-assisted coiling of large aneurysms. J
22 Neurosurg. 2016:1-7.

23
24

1 図表説明

2

3 Figure 1

4 当院初診時の 3D-DSA。不整形の脳底動脈分岐部動脈瘤を認める。

5

6 Figure 2

7 血管造影検査及び血流検査の経過。A: 吻合術前 B: 吻合術後 3 ヶ月(血管内治

8 療直前) C: 血管内治療 1 年後。最上段左: 安静時 ^{123}I -IMP SPECT、最上段

9 右: アセタゾラミド負荷時、中段: 椎骨動脈撮影、最下段左: 左総頸動脈撮影(側

10 面)、最下段右: VAG 側面像(ガレン静脈が描出され始める時位相)。

11

12 Figure 3

13 血管内治療前(Pre)、治療直後(Post)、治療一年後(1Y FU)の DSA 及び 3D-

14 DSA 所見。白矢頭はステントの両端を示す。

15

Fig.1



Fig.2

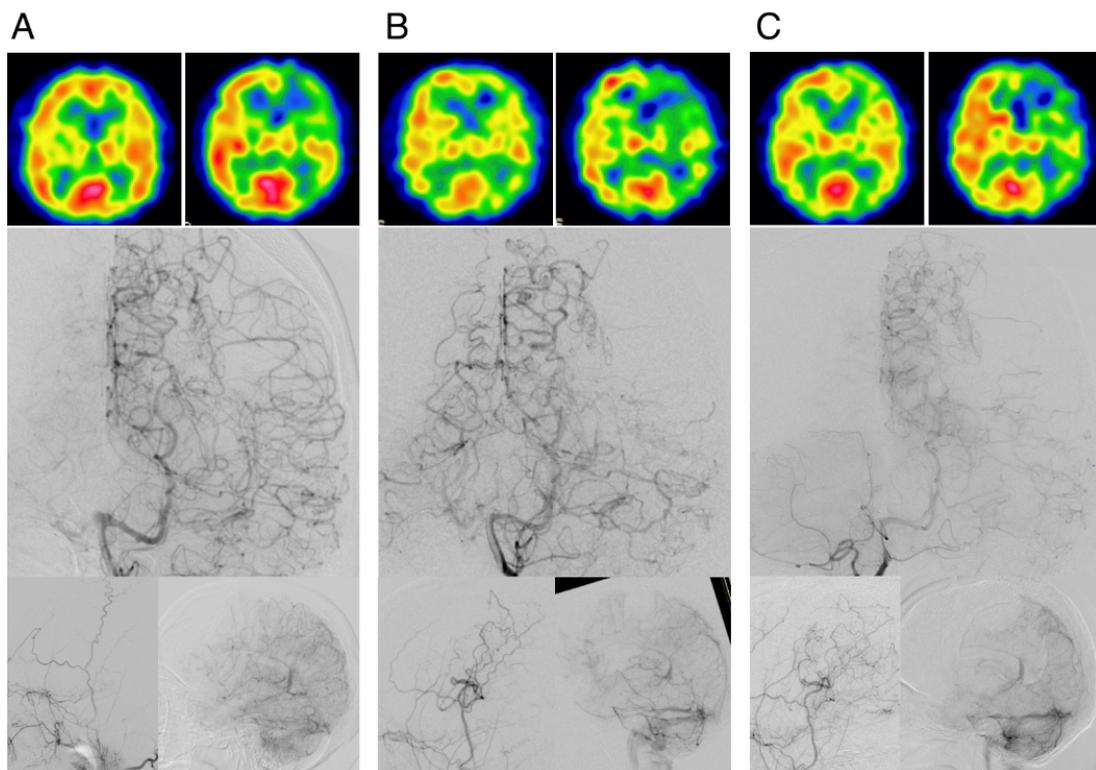


Fig.3

