

1) 論文種別：症例報告

2) タイトル：血管内治療が奏功した両側頸部細菌性動脈瘤の1例

3) 壺井祥史¹⁾、糸川博²⁾、成清道久¹⁾、長山剛太¹⁾、長崎弘和¹⁾、永尾征
弥¹⁾、神林智作¹⁾

4) 所属：1) 川崎幸病院 脳血管センター、2) 新百合ヶ丘総合病院 脳神
経外科

5) 連絡先：川崎幸病院 脳血管センター

〒212-0014 神奈川県川崎市幸区大宮町3-1-27

TEL: 044-544-4611, E-mail: tsuboyoshi@hotmail.com

キーワード：頸部細菌性動脈瘤，ステント留置，コイル塞栓術

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：両側頸部細菌性動脈瘤に対して血管内治療を行い，良好な経過を得た症例を経験したので報告する。

症例：67歳，男性。感染性心内膜炎治療中に両側頸部細菌性動脈瘤を指摘され，当院へ紹介となった。頸部造影CTにて両側頸動脈分岐部周囲に動脈瘤を認めた。抗生剤の投与により，動脈瘤が縮小しなかったため，血管内治療を施行した。両側頸動脈にステント留置術を行い，右側動脈瘤は著明な縮小を認めたが，左側動脈瘤は一時縮小した後，再度動脈瘤が描出されるようになったためコイル塞栓術を追加した。その後、左側動脈瘤の描出は消失した。

結論：頸部細菌性動脈瘤に対して血管内治療は選択肢の一つになり得ると思われた。

緒言

細菌性動脈瘤は感染により動脈壁構造が破壊されて生じるため，非感染性の動脈瘤に比較して破裂頻度が高い。そのため，抗生剤による治療で動脈瘤の縮小が得られない場合は外科的治療が必要となる。頭蓋内の細菌性動脈瘤については直達手術や血管内治療で比較的良好な成績が報告されているが^{1,2)}，頸部細菌性動脈瘤の場合，動脈瘤の剥離操作に伴う出血性合併症のリスクだけでなく，パッチやグラフトによる血管形成や母血管閉塞による虚血性合併症のリスクも高いため治療が困難といわれる^{3,4)}。

今回，我々は植え込み型除細動器の感染後に生じた両側の頸部細菌性動脈瘤に対して血管内治療を行い，良好な経過を得ることができた症例を経験したため，文献的考察を加えて報告する。

症例提示

症例：67歳，男性。

主訴：両側頸部腫瘍

既往歴：肥大型心筋症，心室細動（4年前に植え込み型除細動器留置）

現病歴：意識障害，発熱で他院へ救急搬送された。炎症反応の上昇と経胸壁心エコーで三尖弁周囲に疣贅を認め，植え込み型除細動器感染，感染性心内膜炎と診断された。血液培養からは**Staphylococcus aureus**が検出されたため，バンコマイシンとセファゾリンの点滴治療が開始され，除細動器は抜去された。治療開始から1ヶ月で，炎症反応は改善したが，両側頸部の腫脹が認められたため，造影CTを施行したところ両側の頸動脈瘤が認められた。抗生剤の投与を継続したが，動脈瘤が縮小しなかったため，治療開始から2ヶ月の時点で加療目的に当院へ紹介となった。

現症：意識は清明で，気管切開をしていたため発語は認めなかったが，筆談でコミュニケーションは可能であり，神経脱落症状は認めなかった。両側頸部に拍動性の腫瘍が認められた。

検査所見：血液検査では白血球 8430/ul, CRP 0.5mg/dlで炎症反応は改善していた。造影CTでは右頸動脈分岐部に12mm×9mm, 左頸動脈分岐部に23mm×22mmの動脈瘤を認めた(Figure 1A,B)。血管撮影では右側動脈瘤は頸動脈分岐部から上方に突出しており，左側動脈瘤は頸動脈分岐部近傍の総頸動脈から外側に突出していた (Figure 1C,D)。

入院後経過：前医で処方されていたセファゾリンを継続投与した。血液培養では細菌は検出されず，入院後は発熱なく経過した。前医での治療開始から2ヶ月が経過して，炎症が改善しているにもかかわらず，動脈瘤が縮小していないことから外科的治が必要と判断した。両側性病変であ

ったため、侵襲性の低い血管内治療を選択し、まずは瘤内へのコイルなどの異物の挿入は避け、整流効果による動脈瘤の縮小を期待してステント留置術を施行することとした。

血管内治療と経過：もともとアスピリンを服用していたため、今回の治療5日前からクロピドグレル75mg/日を追加した。まず右側頸動脈のステント留置術を施行した。右総頸動脈に6Fr. Shuttle Guiding Sheath (Cook Medical, Bloomington, IN, USA)を留置した。Guardwire (Medtronic, Minneapolis, MN, USA)を右内頸動脈のcervical portionに誘導し、内頸動脈を遮断した状態で内頸動脈から総頸動脈にかけてCarotid Wallstent (Boston Scientific, Natick, MA, USA) 8×29mmと8×21mmを動脈瘤部分で重複させるようにして留置した。Exportを用いて血液を40ml吸引し、debrisを認めなかったため、内頸動脈の遮断を解除した。撮影を行うと動脈瘤内の造影剤が鬱滞していることが確認できた(Figure 2A,B)。

続いて11日後に左側頸動脈のステント留置術を施行した。左総頸動脈に6Fr. Shuttle sheathを留置した。Guardwireを左内頸動脈のcervical portionに誘導し、内頸動脈を遮断した。内頸動脈から総頸動脈にかけてCarotid Wallstent 10×31mmと10×24mmを右側と同様に重複させて留置した。Exportで血液を60ml吸引し、debrisは認めなかったため、内頸動脈の遮断を解除した。治療後の撮影ではわずかに瘤内への造影剤の停留が認められた (Figure 2 C,D)。

治療2週後に血管撮影を行うと両側ともに動脈瘤の著明な縮小を認めた(Figure 3A,E)。治療4週後の血管撮影ではさらに動脈瘤は縮小しており(Figure 3B,F), modified Rankin Scale 3の状態で開催期リハビリ病院へ転院した。

治療半年後の血管撮影では、右側動脈瘤の描出は治療4間後の血管撮影と比較して変化を認めなかったが、左側は再度動脈瘤が描出されるようになっていた (Figure 3C,G)。この時点で、ステント留置時に追加したクロピドグレルを中止し、バイアスピリン1剤にして経過をみたが、治療1年後の血管撮影で左側動脈瘤の描出はさらに明瞭になっていたため (Figure 3D,H), 動脈瘤部分に対してコイルによる塞栓を追加することとした。

右大腿動脈に9Fr. long sheathを留置し, 9Fr. Optimo (Tokai Medical Products、Aichi、Japan)を左総頸動脈に留置した。塞栓用カテーテルのバックアップとして4.2Fr. FUBUKI (朝日インテック, 愛知) を動脈瘤の入り口近くに留置し, Echelon 10 (MTI-ev3, Irvine, CA, USA)をCHIKAI 0.014 200cm (朝日インテック, 愛知)を用いて前回治療時に重複させて留置したステントメッシュを介して動脈瘤内に誘導した (Figure 4A)。Target 360 soft 6mm×20cm (Stryker, Kalamazoo, MI, USA)を2本, Target 360 soft 5mm×20cmを1本, Target 360 soft 4mm×8cmを2本, Target 360 soft 3mm×8cmを2本留置した。動脈瘤の上方部分に, わずかに造影剤の流入を認めた (Figure 4B)が, マイクロカテーテルが母血管に逸脱して再挿入できなかつたため治療を終了した。治療半年後に血管撮影を行ったところ, 左側の動脈瘤は描出されなくなっていた (Figure 4C)。コイル塞栓術後1年の時点で, 気管切開部は閉鎖し, 頸部の腫脹もなくなり, 後遺症なく通常の日常生活を送っている。

考察

頸部細菌性動脈瘤は稀な疾患である。Knouseらがまとめた74例の頭蓋外細菌性頸動脈瘤のreviewでは、原因菌として最も多いのは黄色ブドウ球菌で、次にサルモネラや大腸菌などの腸内細菌、続いて連鎖球菌と報告されている³⁾。またNakamuraらの報告では、感染の原因としては、外科手術、敗血症、感染性心内膜炎、扁桃周囲感染があり、年代別では10歳代と60歳代にピークを有する2峰性の分布を示すと述べられている⁵⁾。

細菌性動脈瘤の形成には2つの機序が推察されており、1つは敗血症から血管内膜に細菌が着床し、血管壁の脆弱化が起こって動脈瘤を形成する場合で、もう一つは動脈周囲に存在する組織の感染巣から動脈壁へ感染が波及し、動脈壁が破綻する場合である⁶⁾。本症例は先行する感染性心内膜炎があったため前者の機序が考えられる。また、細菌性動脈瘤の発生部位に関しては、動脈硬化病変に細菌が付着しやすいとの報告がある⁵⁾。本症例では両側ともに動脈瘤近位に軽度の狭窄を認めることから、もともと動脈硬化があった場所に細菌が付着し、動脈瘤が形成されたものと推察された。

頭蓋内細菌性動脈瘤と同様に、頸部細菌性動脈瘤の治療においても、抗生剤の投与が優先されるが、残存する動脈瘤を無治療とした場合、動脈瘤の破裂や塞栓性の脳梗塞を起こし、致死率が70-90%に至るとの報告がある⁴⁾。そのため、抗生剤の投与により縮小が認められない場合には速やかに外科的治療を行う必要があると考えられる。頸部細菌性動脈瘤の外科治療には、頸動脈のligationを行うという報告^{7,8)}や、動脈瘤の切除にパッチ閉鎖、または人工血管かsaphenous vein graftによる血行再建術を行うという報告⁹⁻¹²⁾がある。頸動脈のligationは手術後の脳卒中発症率が

50-60%³⁾ , mortalityが17-40%⁴⁾と報告されているため、何らかの原因で血行再建術ができない場合の手段に限られると思われる。しかしながら、動脈瘤切除に血行再建術を行う方法でもmortalityは10-20%と報告されており^{3,4)} , いずれにしても虚血性合併症リスクの高い治療と考えられる。

幸い本症例では良好な治療経過を得ることができたが、過去に頸部細菌性動脈瘤に対して、血管内治療を施行した報告はTable 1に示した通り8例あった¹²⁻¹⁹⁾。動脈瘤の原因は手術や処置に伴うものが4例で、咽頭周囲の炎症が3例、敗血症が1例であった。動脈瘤の特徴としては1例が不整形の拡張を示し、1例が多房性、残りの6例は嚢状であった。このうち根治を狙って血管内治療を施行した症例は4例であった(症例1, 2, 3, 4)。その他の4例は直達手術の前処置としてステント留置またはコイル塞栓術を施行したものであった。この8例の報告では血管内治療後に感染が増悪した症例はなかった。ステント留置で根治が得られたのは1例(症例1)で、不整形の動脈瘤に対して、カバードステントを留置し、動脈瘤の著明な縮小が得られていた。根治を狙ってコイル塞栓術を行ったのは3例(症例2,3,4)で、症例2と3は側副血行を評価した上で、動脈瘤の基部から母血管にかけてコイル塞栓術を行い、良好な転帰が得られていた。しかしながら、症例4ではコイルがmigrationした結果、再出血を来して転帰不良となった。また、症例5では動脈瘤を閉塞した後、直達手術までの間、自壊した皮膚から微小出血が続いていたと報告されている。症例4と5では動脈瘤が頸動脈分岐部に近く、親動脈の閉塞範囲が短いという共通点があった。コイル塞栓術を行う場合は、コイルがmigrationするリスクがあ

るため、側副血行を評価した上で、親動脈を十分閉塞する必要があると思われる。

今回、我々は先行した抗生剤治療により炎症反応が陰性化し、血液培養でも細菌が検出されていないことが確認できた段階で、両側性病変であることを加味して身体的侵襲の少ないステント留置術を行うこととした。ステント留置は塞栓性の合併症に注意し、適切な**protection**を行って留置すれば、比較的安全に施行できる手技である。一方で異物を留置することにより、細菌性動脈瘤が増悪するリスクも否定できない。そのため、感染が沈静化した状態で施行することが望ましく、感染の増悪時にはすぐに直達手術ができる準備をしておくことも重要と考えられる。

頸動脈ステントとしては**open cell stent**である**Precise Pro RX(Cordis, Miami, FL, USA)**、**PROTÉGÉ RX (Covidien Irvine, CA, USA)**と**closed cell stent**である**Carotid Wallstent**が用いられている。今回、整流効果を期待して、より**free cell area**が小さい**Carotid Wallstent**を用いた。ただし、頸動脈の屈曲が強い場合は、ステントが血管に圧着しない可能性があるため、**open cell stent**を用いることも検討する必要があると思われる。

本症例ではステント留置により、右側動脈瘤は速やかな縮小が得られたが、左側動脈瘤は造影部分の拡大を認めたため、コイル塞栓術を追加した。右側動脈瘤が縮小したにも関わらず、左側動脈瘤が拡大した原因としては、発生部位の違いが考えられる。右側動脈瘤は頸動脈分岐部に発生していたが、左側動脈瘤は総頸動脈に発生していた。総頸動脈ではステントセルの面積が分岐部と比較して大きくなるため、整流効果が小さくなったと思われる。コイル塞栓術に関しては、ステント留置術と同様に感染増悪のリスクがあるが、今回はステント留置術から1年以上の

経過観察期間を取ることが出来たため、コイル留置による感染の再燃は低いと考えた。

現時点では、血管内治療が有効であると結論づけることはできないと考えられる。しかしながら、血管内治療は比較的低侵襲で行うことができるため、根治術以外にも直達手術前の前処置として有効な可能性もあり、頸部細菌性動脈瘤の治療オプションの一つにはなり得ると思われた。

利益相反開示

筆頭筆者及び共著者全員が利益相反はない

References:

- 1) Chun JY, Smith W, Halbach VV, et al: Current multimodality management of infectious intracranial aneurysms. *Neurosurgery* 2001; 48: 1203-1213
- 2) Park W, Ahn JS, Park JC, et al: Treatment strategy based on experience of treating intracranial infectious aneurysms. *World Neurosurg* 2017; 97: 351-359
- 3) Knouse MC, Madeira RG, Celani VJ, et al: Pseudomonas aeruginosa causing a right carotid artery mycotic aneurysm after a dental extraction procedure. *Mayo Clin Proc* 2002; 77: 1125-1130
- 4) Pirvu A, Bouchet C, Garibotti FM, et al: Mycotic aneurysm of the internal carotid artery. *Ann Vasc Surg* 2013; 27: 826-830
- 5) Nakamura T, Toyama K, Sato S, et al: A case of mycotic pseudoaneurysm of the external carotid artery following a peritonsillar abscess. *Nihon Jibiinkoka Gakkai Kaiho* 2014; 117: 122-127
- 6) Rogers AC, Bourke M, Galbraith AS, et al: Mycotic aneurysm of the extracranial internal carotid artery, resect and ligate or reconstruct? *Ann Vasc Surg* 2016; S0890-5096(16)30367-3
- 7) Lambert MJ 3rd, Johns ME, Mentzer R, et al: Mycotic carotid artery aneurysm. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1979; 87: 624-627

- 8) Lueg EA, Awerbuck D, Forte V, et al: Ligation of the common carotid artery for the management of a mycotic pseudoaneurysm of an extracranial internal carotid artery. A case report and review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1995; 33: 67-74
- 9) Chan YC, Cheng SW: Mycotic aneurysm of the common carotid artery as a presenting symptom for early colorectal malignancy. *Ann Vasc Surg* 2016; 30:306. e9-12
- 10) Kuy S, Dua A, Desai SS, et al: Ruptured mycobacterial aneurysm of the carotid artery. *Perspect Vasc Surg Endovasc Ther* 2014; 25: 53-56
- 11) Naik DK, Atkinson NR, Field PL, et al: Mycotic cervical carotid aneurysm. *Aust N Z J Surg* 1995; 65: 620-621
- 12) Kaviani A, Ouriel K, Kashyap VS: Infected carotid pseudoaneurysm and carotid-cutaneous fistula as a late complication of carotid artery stenting. *J Vasc Surg* 2006; 43: 379-382
- 13) Baril DT, Ellozy SH, Carroccio A, et al: Endovascular repair of an infected carotid artery pseudoaneurysm. *J Vasc Surg* 2004; 40: 1024-1027
- 14) Brochu B, Dubois J, Garel L, et al: Complications of ENT infections: pseudoaneurysm of the internal carotid artery. *Pediatr Radiol* 2004; 34: 417-420
- 15) Chamseddin KH, Kirkwood ML: Lemierre's syndrome associated mycotic aneurysm of the external carotid artery with primary internal carotid artery occlusion in a previously healthy 18-year-old female. *Ann Vasc Surg* 2016; 36: 291. e11-291

- 16) Goddard AJ, Lenthall RK, Bradley PJ: Endovascular management of infected carotid artery pseudoaneurysm complicating pharyngolaryngectomy: complete occlusion followed by early recurrence and rebleeding. 2004; 118: 991-995
- 17) Reisner A, Marshall GS, Bryant K, et al: Endovascular occlusion of a carotid pseudoaneurysm complicating deep neck space infection in a child. Case report. J Neurosurg 1999; 91: 510-514
- 18) Tsai TC, Barot N, Dalman R, et al: Combined endovascular and open operative approach for mycotic carotid aneurysm. J Vasc Surg 2010; 51: 1514-1516
- 19) Wales L, Kruger AJ, Jenkins JS, et al: Mycotic carotid pseudoaneurysm: staged endovascular and surgical repair. Eur J Vasc Endovasc Surg 2010; 39: 23-25

Figure 1: 造影CT画像(A, B)で左右頸動脈分岐部周囲に動脈瘤を認めた。血管撮影では右側動脈瘤は頸動脈分岐部から上方に突出し(C), 左側動脈瘤は総頸動脈から外側に突出していた(D)。

Figure 2: (A)右内頸動脈をGuardwireで遮断し(矢印), 右内頸動脈から総頸動脈にかけてステントを留置した(1本目: 白矢頭、2本目: 黒矢頭)。ステント留置後, 動脈瘤内への造影剤の流入が減少していた(B)。(C)左内頸動脈から総頸動脈にかけてステントを留置した(1本目: 白矢頭、2本目: 黒矢頭)。ステント留置後, わずかに瘤内への造影剤の停留が認められた(D)。

Figure 3: 治療2週後の血管撮影(A,E)では, 左右ともに動脈瘤の縮小を認めた。治療4週後の血管撮影(B,F)では, 動脈瘤はさらに縮小していた。治療半年後の血管撮影(C,G)では, 右側動脈瘤は著変なかったが, 左側動脈瘤はわずかに拡大していた。治療1年後の血管撮影(D,H)では, 右側動脈瘤は縮小し, 造影部分はわずかになっていたが, 左側動脈瘤はさらに拡大していた。

Figure 4: (A)動脈瘤の手前に4.2Fr. FUBUKIを留置し(矢頭), 動脈瘤内にEcheron 10を誘導した(矢印)。コイル留置後, 動脈瘤の上方部分に, わずかに造影剤の流入を認めた(矢印)。コイル塞栓術半年後の血管撮影(C)では動脈瘤の描出は認めなかった

Talbe 1 Summary of endovascular treatment for mycotic aneurysm of the carotid artery

Case	Age/Sex	Complaint	Cause	Location	Character of the aneurysm	Microbial agent	Diagnosis to treatment	Treatment	Complication	Outcome
1	79/female	cervical mass	CEA	Right CC-IC	irregular dilatation	Staphylococcus epidermitis	NA	Covered stent	-	GR
2	6/female	bleeding	pharyngitis	Left IC	multilobule	β-hemolytic streptococcus	emergency	Coil embolization	-	GR
3	6/female	cervical pain	tonsilitis	Left IC	saccular	NA	NA	Coil embolization	-	GR
4	70/female	bleeding	pharyngolaryngectomy	Left EC	saccular	Enterococci	1 day	Coil embolization	bleeding	Death
5	78/male	bleeding	CAS	Left EC	NA	β-hemolytic streptococcus	emergency	Coil embolization Resection (saphenous vein graft)	bleeding dysphagia	SD
6	79/male	dysphagia dysphonia	dental extraction	Right bifurcation	saccular	Staphylococcus epidermitis Staphylococcus capitis Propionibacterium	NA	Covered stent Resection (saphenous vein graft)	Horner's syndrome tongue deviation	MD
7	18/female	septic shock	pharyngitis	Right EC	saccular	Pseudomonas aeruginosa	NA	Coil embolization Resection Ligation	-	GR
8	67/female	left hemiparesis (infarction)	Sepsis	Right IC	saccular	Escherichia coli	NA	Coil embolization Resection	-	Death
this case	67/male	cervical mass	endocarditis	Right bifurcation Left CC	saccular	Staphylococcus aureus	56 days	Carotid wall stent Coil embolization	-	GR

CEA: carotid endarterectomy, CAS: carotid artery stenting, CC: common carotid artery, IC: internal carotid artery, EC: external carotid artery, GR: good recovery, MD: moderate disability







