

1) 論文種別：症例報告

2) 論文タイトル：

バルーンアシストコイル塞栓術で治療した右鎖骨下動脈瘤の一例

3) 全員の著者名：

南平麻衣^{1,2}、芝 真人²、阪井田博司²、中塚慶徳²、安田竜太²、当麻直樹²、鈴木秀謙²

4) 著者全員の所属施設・部署（論文が執筆された所属）：

¹ 済生会松阪総合病院 脳神経外科

² 三重大学大学院医学系研究科 脳神経外科

5) 連絡著者の氏名・連絡先：

南平麻衣

済生会松阪総合病院 脳神経外科

515-8557 三重県松阪市朝日町 1-15-6 0598-51-2626

baske_05@yahoo.co.jp

6) キーワード：

鎖骨下動脈瘤、バルーンアシストコイル塞栓術、血管内治療、人工血管置換術後

7) 宣言：

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: 未破裂右鎖骨下動脈瘤に対し、バルーンアシストコイル塞栓術で治療した 1 例を報告する。**症例:** 脳梗塞と未破裂脳動脈瘤に対するクリッピング術の既往を有する 77 歳男性。胸部腹部大動脈瘤術後フォローアップ目的の CTA で径約 8mm の未破裂右鎖骨下動脈瘤を指摘された。無症候だが 2 年間の経過で径約 17.6mm に増大したため、バルーンアシストコイル塞栓術で治療した。バルーンを用いてコイルの逸脱を防止することで良好なフレームを形成することができた。術後経過は良好で、動脈瘤の再開通は 18 ヶ月間認めていない。**結論:** 鎖骨下動脈瘤に対するバルーンアシストコイル塞栓術は有用な治療法と考えるが、更なる長期フォローと今後の症例の蓄積が必要である。

【諸言】

鎖骨下動脈瘤は比較的稀で、全動脈瘤の 0.13%と報告されている¹⁾。鎖骨下動脈瘤の多くはこれまで直達手術やステントグラフトを用いた血管内手術で治療されてきた²⁾³⁾。ステントアシストコイル塞栓術で治療された報告もあるが⁴⁾、我々が渉猟し得た範囲ではバルーンアシストコイル塞栓術で治療が行われた報告はない。今回バルーンアシストコイル塞栓術で治療した右鎖骨下動脈瘤の一例を報告する。

【症例呈示】

症例は高血圧、病型不明の脳梗塞、未破裂左中大脳動脈瘤に対するクリッピング術の既往を有する 77 歳の男性である。胸部及び腹部大動脈瘤に対しそれぞれ 7 年前と 5 年前に人工血管置換術を受け、以降定期的に CTA を施行されていた。2 年前に CTA で直径約 8mm の右鎖骨下動脈の嚢状動脈瘤を指摘され、経過観察されていた。経時的に増大したため、当科を紹介された。診察時、意識清明で、明らかな神経脱落症状は認めなかった。右鎖骨周囲に外傷痕はなく、拍動性腫瘍は触知しなかった。また、右上肢に虚血症状は認めず、上腕で測定した血圧に左右差は認めなかった。明らかな外傷歴はなかった。

胸部 CTA では右鎖骨下動脈起始部背側に直径約 18mm の嚢状動脈瘤を認めた(Fig.1)。また、上行大動脈から下行大動脈にかけて人工血管で置換されており、腕頭動脈にも吻合部が認められた(Fig.1)。エコー検査では動脈瘤を示唆するシグナルは認めたがノイズが多く詳細な評価は困難であった。カテーテルによる鎖骨下動脈撮影では、動脈瘤の最大径は 17.6mm、頸部径は 9.8mm で、母血管には軽度の狭窄を認めた(Fig.2)。

心臓血管外科を含めた複数科合同カンファレンスにて検討し、血管内治療を行なうこととなった。抗血栓療法は人工血管置換術後より投薬されていたアスピリン 100mg/日を継続した。

血管内手術は局所麻酔下に左橈骨動脈から 4Fr. 100cm SY5(ハナコメディカル, 埼玉)、右上腕動脈から 6Fr. 55cm Ansel ANL1(Cook, Bloomington, indiana, USA)を挿入して施行した。まず診断撮影用に右腕頭動脈に SY5 を留置し、3D rotational angiography を行い working angle を決定した。引き続き Ansel 先端を鎖骨下動脈遠位に留置した。Intravascular ultrasound sonography を施行したが、血管径が大きいため動脈瘤頸部の詳細な情報は得られなかった。0.014 inch 200cm CHIKAI(朝日インテック, 愛知)を用いて SHOURYU 7-7mm(カネカメディクス, 大阪)を動脈瘤頸部に誘導し、バルーンアシストが行えるように準備した。続いて 0.010/0.014 inch 200cm TENROU(カネカメディクス, 大阪)のガイド下に PX SLIM 045(Penumbra, Alameda, CA, USA)を瘤内に留置した(Fig.3)。次いで、Penumbra coil 400 complex standard(Penumbra, Alameda, CA, USA)18mm-57cm にてフレーミングを行った。遠位側の動脈瘤頸部を覆うように留置した SHOURYU を適宜インフレートしてコイルの逸脱を防止しながらコイルを挿入することで、良好なフレームを形成することができた。続いて同 16mm-60cm、同 14mm-50cm、Penumbra coil 400 complex soft 12mm-35cm、同 10mm-30cm、同 8mm-20cm、同 7mm-20cm、同 6mm-15cm、同 5mm-13cm でフィリングし、ここで PX SLIM 045 が kick back してきたため手技を終了した。フィリング中はバルーンは使用しなかった。最終の血管造影検査で inflow zone を含め動脈瘤頸部は十分 tight に塞栓され complete obliteration (packing density

35.5%)であることと、母血管の開存を確認した。

術中・術後に明らかな神経学的異常は認めなかった。術後の抗血栓療法は、治療前より投薬していたアスピリン 100mg/日を継続した。術後の頭部 MRI にて新規の脳梗塞は認めなかった。その後問題なく経過し、術後 9 日目に退院した。治療 1 か月後に単純 X 線撮影、2 か月後に CTA とエコー、4 か月後に単純 X 線撮影、6 か月後に鎖骨下動脈撮影 (Fig.4) をおこない、コイル形状の変化や動脈瘤の再開通が無いことおよび母血管の開存を確認した。さらに 14 か月後 CTA、18 か月後 MRI でも塞栓状態に変化はなく (Fig.5)、術後経過は良好である。

【考察】

鎖骨下動脈瘤は比較的稀で、その原因として動脈硬化、外傷、胸郭出口症候群がよく知られ、結合組織疾患、膠原病、医原性 (中心静脈穿刺での誤穿刺)、感染や原因不明のものも報告されている⁵⁾⁶⁾。鎖骨下動脈瘤は他部位に動脈瘤を合併している頻度が 33-47%と高く⁷⁾、術前の全身血管の評価および経過中の動脈瘤発生にも注意が必要である。本症例では中大脳動脈瘤及び胸部・腹部大動脈瘤に対する治療歴を有していた。動脈瘤が多発する原因としては結合組織疾患や感染性動脈瘤などが考えられるが、本症例ではこれらを示唆する身体所見・検査所見は認めなかった。また本症例の動脈瘤発生部位は人工血管吻合部とは離れているが、医原性の可能性は否定できない。

鎖骨下動脈瘤の約半数は無症候で発見される⁸⁾。一方で出現する症候としては、381 症例を検討した Vierhout らの報告によれば、拍動性腫瘍などの局所症状が 51%、増大した瘤による mass effect (嚔声、腕神経叢障害、気道狭窄、血管狭窄) が 36%、瘤内血栓による遠位血栓塞栓症が 22%、動脈瘤破裂による喀血や血胸が 9%とされている⁵⁾。破裂した場合には他の動脈瘤と同様に致死性的となる可能性がある。

治療適応には明確な基準はないが、血栓塞栓症の頻度が 9-22%との報告⁵⁾⁹⁾や、保存的治療を受けた症例の 40%が破裂したとの報告¹⁰⁾から、瘤径に関わらず外科的介入が必要と

する意見もある¹¹⁾¹²⁾。本症例は、無症候ながら 2 年間の経過観察の間に明らかに増大した最大径 18mm の動脈瘤であり、上記の症候性合併症を予防するために手術適応と判断した。

鎖骨下動脈瘤はこれまで直達手術やステントグラフトで治療された報告が多く、ステントアシストコイル塞栓術による血管内手術も報告されている²⁾³⁾⁴⁾。2018 年以降の鎖骨下動脈瘤の報告を表に示す (Table 1)³⁾¹³⁾⁻²²⁾。治療方法は、直達術が 25 例、血管内治療が 13 例、直達術と血管内治療のハイブリッドが 3 例であった。血管内治療の内訳は、ステントグラフト 12 例、ステント留置 2 例、ステントアシストコイル塞栓術 1 例、コイル塞栓術 1 例であり、これ以前の報告を含め、バルーンアシストコイル塞栓術による鎖骨下動脈瘤の治療の報告は、我々が渉猟し得た範囲では本症例が初めてである。病因 (胸郭出口症候群や外傷)、動脈瘤の部位 (胸郭内・胸郭外)、併存症などが治療法を決定する上で重要となる。いずれの治療法においても脳血流を維持する重要性が認識されており、特に右鎖骨下動脈瘤は右総頸動脈と近接している場合があるため、より脳血流維持に注意を払った治療戦略が必要である²⁾。本症例では高齢、高血圧、胸部・腹部大動脈瘤に対するグラフト置換術後の癒着の可能性などから、全身麻酔下の直達手術より局所麻酔下の血管内治療の方が適していると考えた。母血管を温存した動脈瘤に対する血管内治療には、ステントグラフトなどのカバードステント、コイル塞栓、ステント留置のみ、などの方法がある⁴⁾。コイル塞栓にも①コイル単独、②バルーンアシスト、③ステントアシストなどの手段が考えられる。動脈瘤の位置、形状、特徴から最適と考えられるものを選択することになる。これまでに多くの報告があるステントグラフトによる治療では、動脈瘤に近接する主要血管を閉塞するリスクがあり、その回避のため様々な方法が試みられている。Funata らや Hosokawa らは右鎖骨下動脈瘤に対するステントグラフトと左右腋窩動脈交叉バイパス術を併用したハイブリッド治療を報告した¹¹⁾¹²⁾。ハイブリッド治療は総頸動脈や椎骨動脈の血流遮断を回避でき、かつ胸骨正中切開による直達手術と比較して低侵襲であるが、本症例で施行した血管内手術単独治療と比較すれば侵襲性はより高い。しかし血管内手術を単独で行う場合、頸部の広い動脈瘤に対するコイル塞栓術では、コイル

が逸脱したり、コイルが十分に充填できない可能性がある。本症例ではこれらを防止する手段としてバルーンアシストまたはステントアシストを検討した。ステントを留置しないバルーンアシストの利点としては、強力な抗血栓療法が不要であることや、後日に他病変の治療などの目的でコイル塞栓部近傍の血管内操作が必要になった際に、手技に伴うステントの損傷・干渉などの問題が生じないことが挙げられる。本疾患は複数の動脈瘤を合併することが多く、複数回手術が必要となる可能性を考慮しておく必要がある。本症例は母血管に軽度の狭窄を認めており、この部分での血流停滞に伴う動脈瘤へのストレスを軽減する目的で、ステントを留置することも選択肢として考えられるが、再度血管内操作が必要となった場合のステントの損傷・干渉の危険性を考慮して、まずは可能であればバルーンアシストのみで終了し、再発を認めた場合にステント留置を追加するという治療戦略を選択した。今回は、大動脈弓および腹部大動脈のグラフト置換術後であることを考慮して、最もグラフト損傷のリスクが低いと考えられる右上肢からのアプローチで手技を行った。実際にコイル塞栓を開始すると動脈瘤頸部は比較的狭く、適宜バルーンアシストを行うのみでコイルを瘤内に収めることができた。また、母血管が 4mm 以上のため動脈瘤頸部径 9.8mm ではあるが、SHOURYU 7-7mm を用いた。フレーミングコイルの逸脱を防止すれば、完全に頸部を覆わなくてもコイルが安定する動脈瘤の形状と考えた。なお、バルーンアシストのみで治療を完結できない場合に備えてステントを準備していたが、結果的に使用しなかった。

我々が渉猟し得た範囲では、鎖骨下動脈瘤をバルーンアシストコイル塞栓術で治療した報告はなく、その長期予後は明らかではないが、Oh らはステントアシストコイル塞栓術で治療を行い、術後 3 年間再発していない症例を報告している¹⁴⁾。本症例も 1 年 6 か月の時点では再発は認めていない。また、腕頭動脈瘤の症例ではあるがコイル塞栓術後 1 年 7 か月で破裂した報告がある²³⁾。破裂を疑う場合、コイルのアーチファクトにより CT では瘤径や塞栓状態の評価が困難であるため、早期に鎖骨下動脈撮影を行う必要がある²³⁾。本症例は術後 1 年 6 か月の経過は良好であるが、コイル塞栓術がより長期的に有効か判断するためには、

今後の更なるフォローアップと症例の蓄積が必要である。

【結語】

大動脈弓部全置換術後の右鎖骨下動脈瘤に対し、バルーンアシストコイル塞栓術を行い良好な結果を得た。鎖骨下動脈瘤に対する本治療法は低侵襲であり、直達手術と違い血流遮断を要さず、術中も脳血流にほとんど影響しない有用な治療法と考える。本治療法の長期的な有用性を明らかにするため、更なる長期フォローと今後の症例の蓄積が必要である。

【利益相反開示】

本論文に関し筆頭著者及び共著者全員に利益相反はない。

【文献】

- 1) Dent TI, Lindenauer SM, Ernst CB, et al. Multiple atherosclerotic arterial aneurysms. Arch Surg 1972;105:338-344
- 2) Yamazaki M, Hachiya T, Yamashiro M, et al. Successful Surgical treatment of right subclavian artery aneurysm: report of two cases. Heart 2014;46:620-626
- 3) Li L, Gu Y, Qi L. Endovascular repair of a subclavian artery aneurysm in Behçet's disease. Interact Cardiovasc Thorac Surg 2018;27:461-462
- 4) Matsumoto S, Nakahara I, Higashi T, et al. Successful combination therapy with parallel stent-graft placement and coil embolization for a treatment of a fusiform brachiocephalic artery aneurysm: a case report. JNET J Neuroendovasc Ther 2008;2:56-61
- 5) Vierhout BP, Zeebregts CJ, van den Dungen JJ, et al. Changing profiles of diagnostic and treatment options in subclavian artery aneurysms. Eur J Vasc Endovasc Surg 2010;40:27-34
- 6) McCollum CH, Da Gama AD, Noon GP, et al. Aneurysm of the subclavian artery. J Cardiovasc Surg 1979;20:159-164

- 7) Coselli JS, Crawford ES. Surgical treatment of aneurysms of the intrathoracic segment of the subclavian artery. *Chest* 1987;91:704-708
- 8) Shah A, Katz ES, Stern A, et al. Isolated subclavian artery aneurysm: evaluation by transesophageal echocardiography. *Echocardiography* 2004;21:73-76
- 9) Dougherty MJ, Calligaro KD, Sararese RP, et al. Atherosclerotic aneurysm of the intrathoracic subclavian artery: a case report and review of the literature. *J Vasc Surg* 1995;21:521-529
- 10) Austin E, Wolfe W. Aneurysm of aberrant subclavian artery with a review of the literature. *J Vasc Surg* 1985;2:571-577
- 11) Funata S, Uchida T, Hamasaki A, et al. Endovascular treatment of intrathoracic right subclavian artery aneurysm after cardiac surgery. *Jpn Vasc Surg* 2016;25:177-180
- 12) Hosokawa Y, Onitsuka S, Tobinaga S, et al. Hybrid treatment of the intrathoracic right subclavian artery aneurysm. *Jpn J Cardiovasc Surg* 2014;43:270-273
- 13) D'Oria M, Pipitone M, Chiarandini S, et al. Hybrid treatment of a true right subclavian artery aneurysm involving the vertebral artery using a covered stent. *Ann Vasc Surg* 2018;53:273.e7-273.e11
- 14) Oh JK, Lee JH. Bidirectional transradial and transfemoral approach for stent-assisted coil embolization of right subclavian artery saccular aneurysm. *Vasc Endovascular Surg* 2018;52:565-568
- 15) Pallett SJC, Singh I, Rady N, et al. Delayed subclavian artery aneurysm following fixation of a clavicular fracture. *Vasc Endovascular Surg* 2018;52:459-462
- 16) Franz RW, Fraser SR. Endovascular repair of incidentally found subclavian artery aneurysm: a case report from an urban level 1 trauma center. *Vasc*

Endovascular Surg 2018;52:382-385

17) Kaneyuki D, Ueda H, Matsumiya G. Right subclavian artery aneurysms with fibromuscular dysplasia. Ann Vasc Surg 2018;48:253.e7-253.e9

18) El Khoury R, Greenspahn BR, Jacobs CE, et al. Minimally invasive repair of left subclavian artery aneurysm. Cardiovasc Revasc Med. 2019 May 22 [Epub ahead of print]. doi: 10.1016/j.carrev.2019.05.013

19) Davidovic LB, Zlatanovic P, Ducic S, et al. Single center experience in the management of a case series of subclavian artery aneurysms. Asian J Surg. 2019 May 18 [Epub ahead of print]. doi: 10.1016/j.asjsur.2019.04.012

20) Gillen J, Tse L, Berg A, et al. Hybrid repair of an intrathoracic bilobed subclavian artery aneurysm. Ann Vasc Surg 2019;59:312.e11-312.e14

21) Ramtoola MT, Bhatti M, Shetty R. A case report of a ruptured subclavian artery aneurysm presenting to the emergency department. Clin Case Rep 2019;7:797-800

22) Archie MM, Gelabert HA. Endovascular reconstruction of subclavian artery aneurysms in patients with arterial thoracic outlet syndrome. Ann Vasc Surg 2019;57:10-15

23) Terada S, Tabuchi M, Yamauchi A. Rupture of saccular brachiocephalic artery aneurysm after one year and seven months from coil embolization: report of a case. Kyobu Geka 2016;69:959-962

【図表の説明】

Figure 1. 術前 3D CTA

右鎖骨下動脈起始部背側に嚢状動脈瘤(矢印)を認める(A:3D、B:矢状断)。大動脈弓部

グラフトとの移行部を矢頭で示す(C:3D 右側面、D:3D 正面)。

Figure 2. 術前右鎖骨下動脈撮影(Maximum Intensity Projection 画像)

動脈瘤は最大径 17.6mm、頸部径 9.8mm で、頸部遠位の母血管径は 4.7mm で軽度の狭窄を認める。

Figure 3. 術中血管撮影所見(A~D:正面、E~H:側面)

A、E:動脈瘤頸部へバルーンを誘導。

B、F:カテーテルを動脈瘤の outflow zone から入り先端(矢印)が inflow zone を向くように瘤内に誘導し留置。

C、G:瘤内に 1 本目のコイルを留置しフレームを作成。

D、H:コイル塞栓術後の血管撮影で complete obliteration と、母血管の開存を確認。

Figure 4. 術後 6 ヶ月の鎖骨下動脈撮影

動脈瘤の再開通の所見は認めず、母血管は開存している(A: subtraction 前、B: subtraction 後、C:3D rotational angiography)。

Figure 5. 術後 12 ヶ月の CTA(A:軸位断、B:矢状断)と 18 ヶ月後の CINE MRI(C:軸位断、D:矢状断)

CTA ではコイルのアーチファクトで動脈瘤頸部周囲の詳細な評価は難しいが、母血管の血流は保たれている。MRI では動脈瘤(矢頭)の塞栓状態に変化はみられない。

Table 1. 2018-2019年に報告された鎖骨下動脈瘤のまとめ

	報告者	報告年	年齢	性別	原因	部位	最大径 (mm)	症候の有無	症候	治療法
1	D'Oria M ¹³⁾	2018	69	M	記載なし	胸郭内、右	30	無症候性		ハイブリッド (バイパス+ステントグラフト)
2	Jin Kyung Oh ¹⁴⁾	2018	72	M	記載なし	胸郭内、右	35	無症候性		ステントアシストコイル
3	Pallett SJC ¹⁵⁾	2018	28	M	外傷	胸郭外、左	記載なし	症候性	左上肢の跛行	直達
4	Li L ³⁾	2018	32	M	ベーチェット病	胸郭外、左	記載なし	症候性	左頸部痛、左肩痛	ステントグラフト
5	Franz RW ¹⁶⁾	2018	61	M	外傷の可能性	胸郭内、右	72	症候性	左胸腹部痛	ステントグラフト
6	Kaneyuki D ¹⁷⁾	2018	20	M	線維筋性異形成	胸郭外、左	25	無症候性		直達
7	El Khoury R ¹⁸⁾	2019	79	M	外傷	胸郭内外の記載なし、左	21	無症候性		ステント留置
8	Davidovic LB ¹⁹⁾	2019	42.84±14.66	M : 17 F : 8	胸郭出口症候群:18例 動脈硬化:5例 外傷:2例	胸郭内、右:2例	記載なし	症候性:3例	呼吸困難:1例、血胸:2例	直達:2例
						胸郭内、左:3例		無症候性:2例		直達:2例、ハイブリッド (バイパス+ステントグラフト):1例
						胸郭外20例 左右の記載なし		症候性:19例 無症候性:1例	肩の痛みと拍動性腫瘍:7例、急性虚血:5例、慢性虚血:7例	直達:19例、ステントグラフト:1例
9	Gillen J ²⁰⁾	2019	47	M	動脈硬化	胸郭内、右	27	症候性	右上肢痛	ハイブリッド (バイパス+コイル塞栓)
10	Ramtoola MT ²¹⁾	2019	74	M	動脈硬化	胸郭内、右	記載なし	症候性(破裂)	息切れ・背部痛	ステント留置
11	Archie MM ²²⁾	2019	平均39 (17-66)	M : 4 F : 3	胸郭出口症候群	胸郭内外の記載なし、右:2例、左:5例	平均21 (20-22)	症候性7例	四肢虚血:7例	ステントグラフト:7例
12	本例	2019	77	M	不明	胸郭内、右	18	無症候性		バルーンアシストコイル

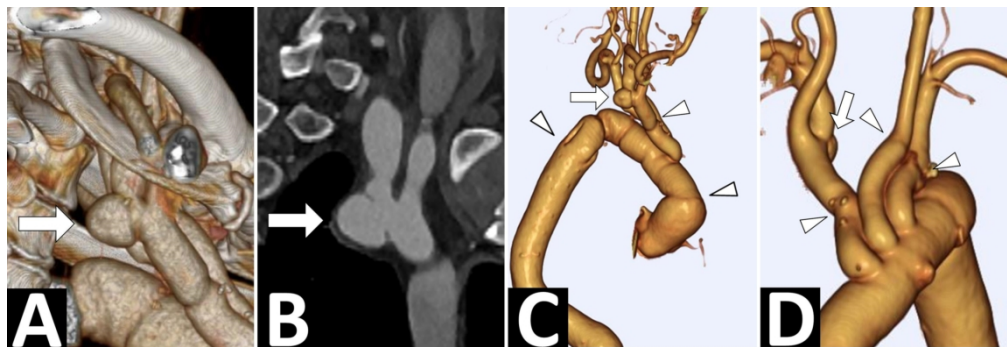


Figure1

384x130mm (300 x 300 DPI)

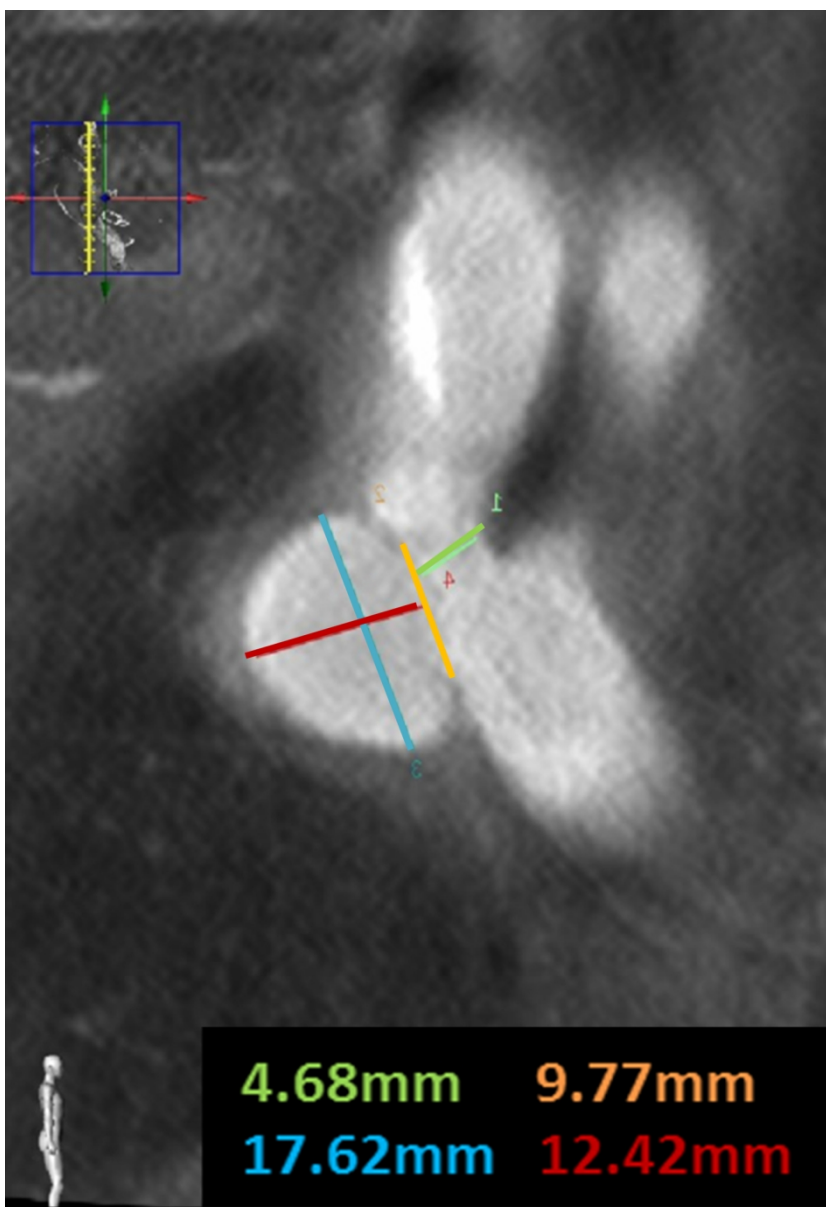


Figure2

130x188mm (300 x 300 DPI)

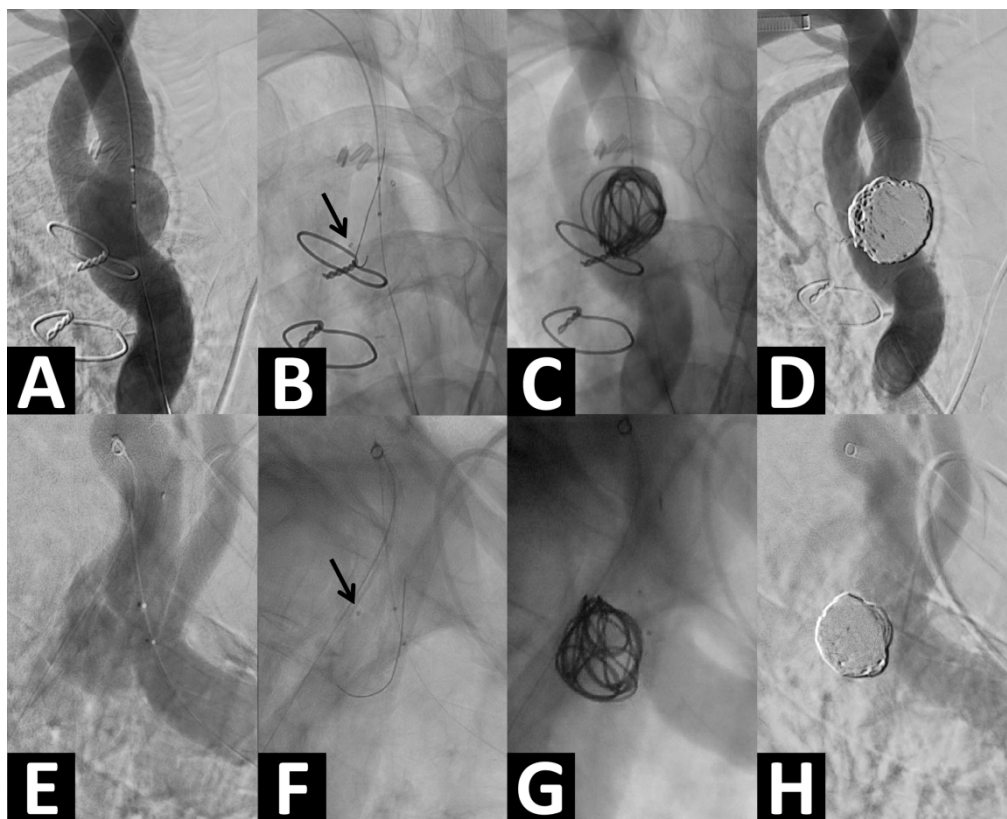


Figure3

214x173mm (300 x 300 DPI)

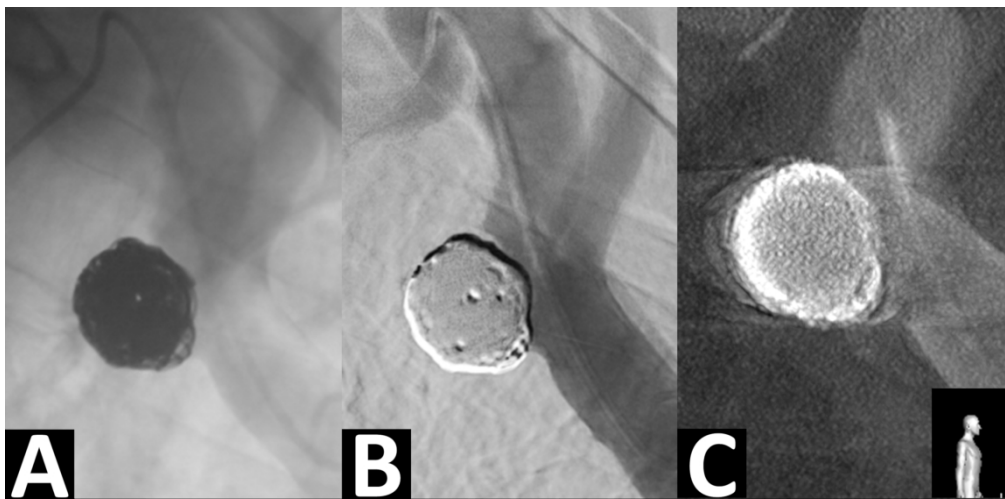


Figure4

262x128mm (300 x 300 DPI)

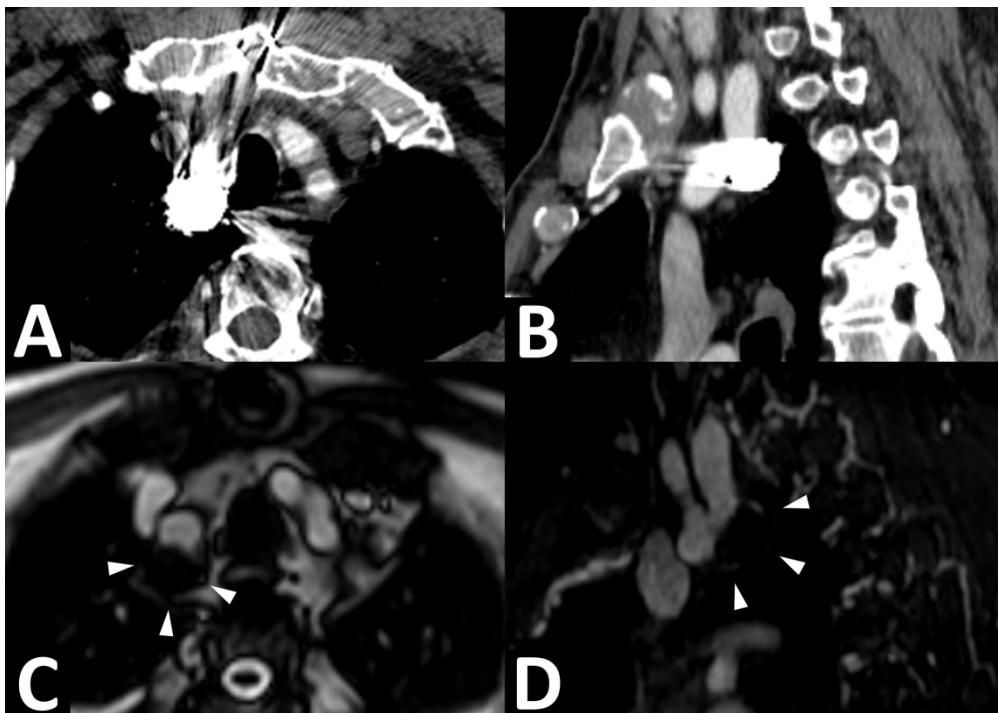


Figure5

211x149mm (300 x 300 DPI)