

論文種別：症例報告

論文タイトル：急性期に Overlapping stent を併用し塞栓術を行なった前大脳動脈破裂解離性動脈瘤の一例

著者名：土屋尚人 1)、藤原秀元 1)、高橋陽彦 2)、小倉良介 2)、吉村淳一 1)藤井幸彦 2)

所属施設・部署

1) 長野赤十字病院脳神経外科

2) 新潟大学脳研究所脳神経外科

連絡先：土屋尚人(長野赤十字病院脳神経外科、〒380-8582 長野県長野市若里五丁目 22 番 1 号 TEL 026-226-4131(代) FAX 026-228-8439 (代) mail:n.tsuchi@mac.com)

キーワード` dissection, anterior cerebral artery, overlapping stent

本論文を，日本脳神経血管内治療学会 機関誌「脳血管内治療」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】罹患動脈の温存を要する破裂前大脳動脈解離の標準的治療法は確立しておらず、症例に応じて様々な治療が試みられている。破裂急性期に Overlapping stent 法を併用し解離腔のコイル塞栓術を行なった症例につき報告する。

【症例】51歳、女性。左片麻痺 TIA で発症し入院。翌日に左片麻痺と頭痛・嘔吐を来し CT でくも膜下出血を認めた。右 A1 に解離性動脈瘤を認め、Acom を介した cross flow は乏しく trapping はできない状況であった。出血翌日に Overlapping stent 法併用下に解離腔のコイル塞栓術を行なった。再出血はみられず、6 ヶ月後の血管撮影では動脈瘤の再増大は見られていない。

【結論】

本例では良好な結果を得たが、破裂急性期の stent 使用や Overlapping stent の危険性や安全性について十分なデータはなく、更なる症例の蓄積と検討を要する。

緒言

出血発症の前大脳動脈解離に対しては、可能であれば直達術または血管内治療による trapping が行われる。しかし十分な側副血行のない病変においては bypass の併用または罹患動脈を温存しての治療が必要となる。椎骨動脈解離や内頸動脈の血豆状動脈瘤においてはコイル塞栓術と overlapping stent による flow diversion を併用した治療が試みられており、良好な結果が報告されている。同様の治療を出血発症の前大脳動脈解離において行い、良好な結果を得

た症例について報告する。

症例提示

症例：51歳、女性

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：高血圧で2年前から降圧剤内服中。

現病歴：農作業中に左片麻痺で発症し救急車で搬送された。発症前には頭重感はあったが強い頭痛はなかった。来院時にはすでに麻痺は改善しており、神経学的異常所見を認めなかった。TIAとして入院、保存的に治療が開始された。しかし入院翌日に突然強い頭痛・嘔吐と重度の左片麻痺を来し、CTでくも膜下出血を認めた（H & K grade IV、WFNS grade III）。

画像所見：来院時のCT、MRIでは虚血巣の描出はなかったがMRAではrt.A1が一部描出不良であった。T1 black bloodでは同部の血管壁はやや厚く見え、等信号であった。入院翌日くも膜下出血発症直後に行われた3DCTAで右A1に紡錘状の動脈瘤を認め、同日のDSAでも同様の所見であった（Fig.1）。急激な形状変化やintimal flapの所見から解離性動脈瘤の破裂と考えられた。Matas testではAcomを介したcross flowは見られず、trappingはできない状況であった。

治療：出血は重度であり待機的治療では厳しい予後が予想されることから、出血翌日に全身麻酔下に血管内治療を行なった。通常のStent assisted coil embolizationでは再破裂、再増大の危険が高いと考え、overlapping stentによるflow diversionも併用するこ

ととした (Fig. 2)。治療に先立ち、緊急で院内倫理委員会を開催し承認を得た。

右大腿動脈に 9Fr ロングシースを留置し、ヘパリンを使用し ACT250～300 を目標にコントロールした。破裂に備え 9Fr Optimo (東海メディカル, 愛知) を guiding として内頸動脈起始部に進めた。SHOURYU HR 7×7mm (カネカメディックス, 大阪) を内頸動脈遠位に進め、これを用いて再度 Matas test を行なったが患側 A2 への前交通動脈を介した側副血行は描出されなかった。Down the barrel view を得るためには左下から右上への C-arm 到達不能な角度が必要であり、頭部を右に 20° 側屈した状態で固定し角度がとれるように工夫した。Down the barrel view では正常構造を残していると思われる A1 の内側下方の壁が観察可能であり、この部を伝うようにガイドワイヤーを進めると安全に病変部の通過が可能であった。HEADWAY17 45° (MicroVention Terumo, Aliso Viejo, CA, USA) を患側 A2 まで進めた後、J 型に Steam shaping した HEADWAY DUO (MicroVention Terumo) を解離腔に進めた。胃管からアスピリン 300mg、クロピドグレル 300mg を注入したのち、カテーテルの安定のためコイルを一周出した状態で A2～A1 に LVIS jr. 2.5×23mm (MicroVention Terumo) を展開し、jailing technique で解離腔をコイルで塞栓した。最後に Neuroform atlas3.0 × 21mm (Stryker Neurovascular, Fremont, CA, USA) を展開し overlapping stent とした。

術後経過：治療 3 日後の MRI では前大脳動脈領域に多発梗塞を認め解離に伴う虚血、操作による遠位塞栓の可能性が考えられた (Fig. 3)。

くも膜下出血発症時から見られていた左片麻痺と高次機能障害は術後も持続した。症候性血管攣縮は来さず、左片麻痺と高次機能障害は緩徐に改善が見られた。NPHに対してVPシャントを施行し、リハビリ転院ののち mRS1 で自宅退院した。治療6ヶ月後の血管撮影では再開通の所見は見られていない。

考察

前大脳動脈の解離は稀な疾患であるが、若年者における虚血やくも膜下出血の原因の一つとして重要である。Henslerらは過去に報告された80例の前大脳動脈解離について meta-analysis を行っているが、Median ageは51歳と若く、58例(73%)で虚血、8例(10%)でくも膜下出血、14例(17%)では両者を来していたと報告している¹⁾。

虚血例では薬物治療が主体となるが、出血例の治療方法としては定まったものがない。明らかな仮性動脈瘤がなく大脳半球間や convexity sulci に限局した SAH では保存的治療で予後良好であったとする報告があるが²⁾³⁾⁴⁾⁵⁾⁶⁾、近位部の病変では Trapping や Proximal ligation が行われる⁷⁾⁸⁾。しかし側副血行が悪い場合にはこれらの治療は困難であり、Bypass や Stent を用いた再建的治療が必要になる。Bypass では施行頻度の少ない Side to side anastomosis や Interposition graft を必要とすることが問題となる。

前大脳動脈解離に対する再建的血管内治療の報告は少ないが、Stent assisted coil embolization や flow diverter を用いた治療例が報告されている。Review を Table 1 に示す。

高橋らは亜急性期の A2 破裂解離性動脈瘤に Stent assisted coil embolization を行った症例を報告している⁹⁾。この例では術後に再出血は見られなかったが治療後 40 日で瘤の増大を認め bypass と trapping が行われており、single stent での治療では十分でない可能性が示唆されている。Im らも破裂例に Stent assisted coil embolization を行なっており、術前の grade が悪く予後良好ではなかったが完全閉塞を得たと報告している⁶⁾。未破裂だが解離の進行、瘤の増大を認めた例に対しては Park¹⁰⁾, Iwasaki¹¹⁾, Hensler¹²⁾ らが Stent assisted coil embolization の報告をしており、それぞれ良好な経過を報告している。

Flow diverter を用いた例としては Lozupone らが破裂例に対して急性期に Flow diverter 単独で治療を行い、Lin らが未破裂例に対して single または double で flow diverter を留置しそれぞれ良好な経過を報告している¹³⁾¹⁴⁾。

前大脳動脈解離に対して Overlapping stent とコイル塞栓術を行なった報告はこれまでない。本治療は Stent assisted coil embolization と Flow diverter の中間の治療として位置付けることができるが、一つの選択肢として安全性や有効性を前二者と比較検討していく必要があると考えられる。

また Overlapping stent で使用する Stent の種類についても検討を要する。Lim らは椎骨動脈解離において Enterprise で血管腔を確保し解離腔への過度の突出を防いだうえで、LVIS Blue で flow diverting effect を得る方法を報告している¹⁵⁾。本例においては血管径が小さいことからこの方法は適していないと考えられた。

Neuroform Atlas では良好な拡張力が期待できる反面、解離腔に突出し十分な瘤内塞栓ができない可能性があるため First stent に LVIS jr. を使用して血管腔を確保し、その上で拡張力を補いつつ metal coverage を上げるために second stent に Neuroform Atlas を追加した。

前大脳動脈以外の解離性動脈瘤の血管内治療については、より頻度の高い椎骨動脈の解離で多数の血管内治療の報告が見られる。罹患動脈の温存を要する破裂椎骨動脈解離性動脈瘤の血管内治療についての Meta-analysis では、Stent assisted coil embolization による再建的治療を行われた例で ligation や trapping と比較して再出血率に差はないとされている。しかし Stent assisted coil embolization では治療後の再増大の頻度が高かったと報告されている¹⁶⁾。

椎骨動脈の解離に対しては Flow diversion による治療も試みられている。Cerejo らは未破裂または破裂慢性期の椎骨動脈の解離に対して flow diverter で治療し良好な結果を報告している¹⁷⁾。未破裂椎骨動脈解離ではコイル塞栓を行わない Neck bridging stent を用いた Overlapping stent¹⁵⁾も試みられ、良好な結果が報告されている。破裂例では multiple stent assist でのコイル塞栓の有効性が報告されている¹⁸⁾。

内頸動脈の血豆状動脈瘤に対してもコイル塞栓を併用した flow diversion の有効性が報告されている。Stent assisted coil embolization における比較検討においては single stent に比較して overlapping stent で完全閉塞率が高く再発率が低いことが示

されている¹⁹⁾。

以上から解離性動脈瘤などの脆弱な壁を有する動脈瘤での本治療の有効性が徐々に示されつつあると考えられる。しかし前大脳動脈病変では血管径が細く、ステント使用に伴う血栓性合併症が危惧される。本例においてはくも膜下出血発症時から重度左片麻痺を来しており治療に伴う脳梗塞の評価は困難であった。術中の血栓形成や血管閉塞は見られなかったが、今後多数例での検討が必要と考えられる。

結論

破裂前大脳動脈解離性動脈瘤の治療において Overlapping stent を併用したコイル塞栓術を行なった症例を報告した。

本邦において Neck bridging stent の適応は未破裂動脈瘤に限定されている。本例ではやむを得ず適用外の治療を行なったが、破裂急性期の stent 使用や Overlapping stent の危険性や安全性について十分なデータはなく、更なる症例の蓄積と検討を要すると考えられる。

利益相反の開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

文献

1. Hensler J, Jensen-Kondering U, Ulmer S, et al.

- Spontaneous dissections of the anterior cerebral artery:
a meta-analysis of the literature and three recent cases.
Neuroradiology. 2016;58:997-1004.
2. Nagahata M, Seino H, Kakehata S, et al. Dilated outer diameter of the dissected artery: Acute bilateral anterior cerebral artery dissection evaluated by repeat magnetic resonance cisternography. Neurol Med Chir (Tokyo). 2010;50:1095-1098.
 3. Nanbara S, Tsutsumi K, Takahata H, et al. Spontaneous dissection of the anterior cerebral artery that simultaneously presented with cerebral infarction and subarachnoid hemorrhage, successfully treated with conservative management: A case report. Neurol Surg. 2012;40:635-642.
 4. Kentaro Suzuki, Masahiro Mishina, Seiji Okubo, Arata Abe, Satoshi Suda MU and YK, Department. Anterior Cerebral Artery Dissection Presenting Subarachnoid Hemorrhage and Cerebral Infarction. J Nippon Med Sch. 2012;79:153-158.
 5. Kato Y, Hayashi T, Uchino A, et al. Fusiform dilatation of the outer contour of a dissected anterior cerebral artery revealed by magnetic resonance cisternography in a patient with simultaneous cerebral infarction and subarachnoid hemorrhage. J Stroke Cerebrovasc Dis. 2014;23:1717-1720.

6. Im T-S, Lee Y-S, Suh S-J, et al. Two Cases of Subarachnoid Hemorrhage from Spontaneous Anterior Cerebral Artery Dissection : A Case of Simultaneous Hemorrhage and Ischemia Without Aneurysmal Formation and Another Case of Hemorrhage with Aneurysmal Formation. J Cerebrovasc Endovasc Neurosurg. 2014;16:119.
7. Ohkuma H, Suzuki S, Kikkawa T, et al. Neuroradiologic and clinical features of arterial dissection of the anterior cerebral artery. Am J Neuroradiol. 2003;24:691-699.
8. Inoue T, Fujimura M, Matsumoto Y, et al. Simultaneous occurrence of subarachnoid hemorrhage and cerebral infarction caused by anterior cerebral artery dissection treated by endovascular trapping. Neurol Med Chir (Tokyo). 2010;50:574-577.
9. Takahashi Y, Endo H, Endo T, et al. Patient with Recurrent Anterior Cerebral Artery Dissecting Aneurysm After Stent-Assisted Coil Embolization Successfully Treated with A3-A3 Anastomosis. World Neurosurg. 2018;109:77-81.
10. Park YK, Yi HJ, Lee YJ, et al. Spontaneous anterior cerebral artery dissection presenting with simultaneous subarachnoid hemorrhage and cerebral infarction in a patient with multiple extracranial arterial dissections. J Korean Neurosurg Soc. 2013;53:115-117.

11. Iwasaki M, Hattori I, Sasaki M, et al. Stent-assisted coil embolization for anterior cerebral artery dissection presented with cerebral infarction. *Surg Neurol Int.* 2015;6:182.
12. Hensler J, Jensen-Kondering U, Ulmer S, et al. Spontaneous dissections of the anterior cerebral artery: a meta-analysis of the literature and three recent cases. *Neuroradiology.* 2016;58:997-1004.
13. Lozupone E, Piano M, Valvassori L, et al. Flow diverter devices in ruptured intracranial aneurysms: A single-center experience. *J Neurosurg.* 2018;128:1037-1043.
14. Lin N, Lanzino G, Lopes DK, et al. Treatment of distal anterior circulation aneurysms with the pipeline embolization device: A US multicenter experience. *Neurosurgery.* 2016;79:14-22.
15. Lim YC, Shin YS, Chung J. Flow Diversion via LVIS Blue Stent within Enterprise Stent in Patients with Vertebral Artery Dissecting Aneurysm. *World Neurosurg.* 2018;117:203-207.
16. Sönmez, Brinjikji W, Murad MH, et al. Deconstructive and reconstructive techniques in treatment of vertebrobasilar dissecting aneurysms: A systematic review and meta-analysis. *Am J Neuroradiol.* 2015;36:1293-1298.
17. Cerejo R, Bain M, Moore N, et al. Flow diverter treatment

- of intracranial vertebral artery dissecting pseudoaneurysms. J Neurointerv Surg. 2017;9:1064-1068.
18. Zhao KJ, Zhao R, Huang QH, et al. The Interaction between Stent(s) Implantation, PICA Involvement, and Immediate Occlusion Degree Affect Symptomatic Intracranial Spontaneous Vertebral Artery Dissection Aneurysm (sis-VADA) Recurrence after Reconstructive Treatment with Stent(s)-Assisted Co. Eur Radiol. 2014;24:2088-2096.
19. Fang Y, Zhu D, Peng Y, et al. Treatment of Blood Blister-like Aneurysms with Stent-Assisted Coiling: A Retrospective Multicenter Study. World Neurosurg. 2019;126:e486-e491.

図表の説明

Figure 1 (A)MRA at admission didn't reveal any aneurysm. Stenosis of distal A1 was suspected (white arrow). (B) Simultaneous T1 Black blood image showing thin isointensity wall at distal A1 (white arrow). (C) CT scan on the following day showing diffuse subarachnoid hemorrhage in the basal cistern. (D,E) Digital subtraction angiography and 3D rotational angiography of lt. ICA demonstrated A1 aneurysm (white arrow). (F) Medial view of 3D rotational angiography exposed intimal flap and partially remained normal vessel wall.

Figure 2 (A) To take “down the barrel” view, patient’s head had to be leaned to the right. (B) Precise angle enabled to see remained normal wall (arrow head). Guide wire was advanced along this side. (C) First loop of the coil was inserted prior to stent deploy (white arrow). After the deployment, microcatheter was re-advanced (white arrow head). (D) (E) (F) Second stent was deployed after loose packing of pseudolumen.

Figure 3 DWI after treatment revealed multiple infarction in rt. ACA territory.

Table 1 Literature review with reconstructive endovascular treatment of ACA dissections.

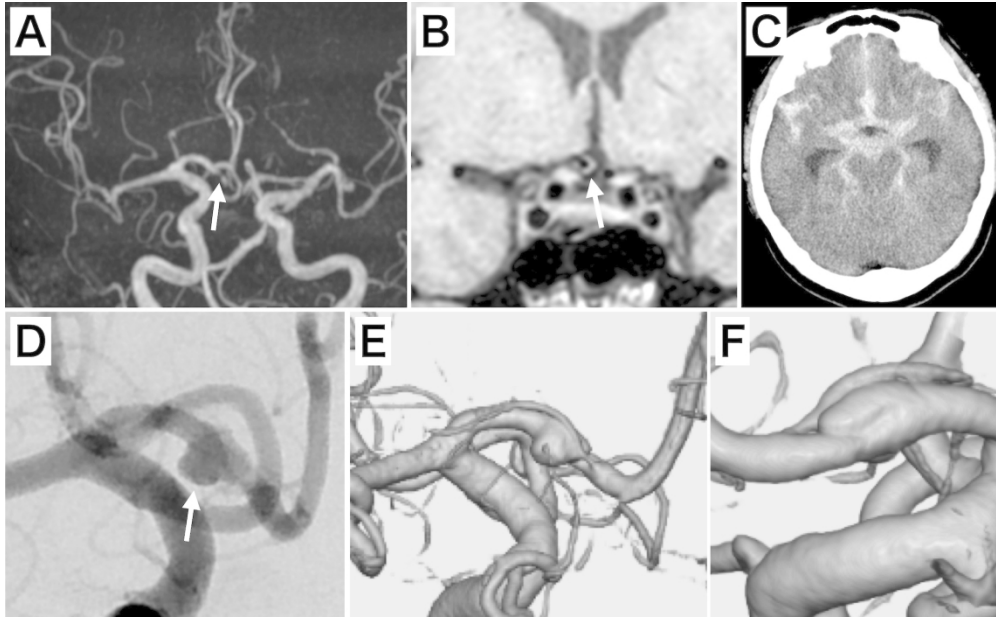


Fig.1

206x127mm (300 x 300 DPI)

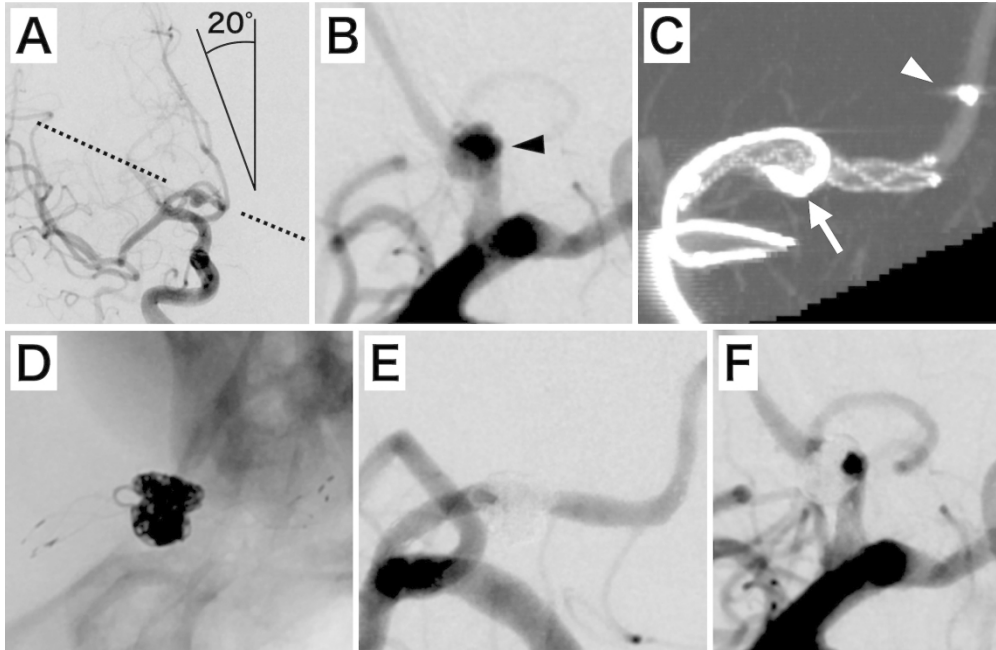


Fig.2

195x127mm (300 x 300 DPI)

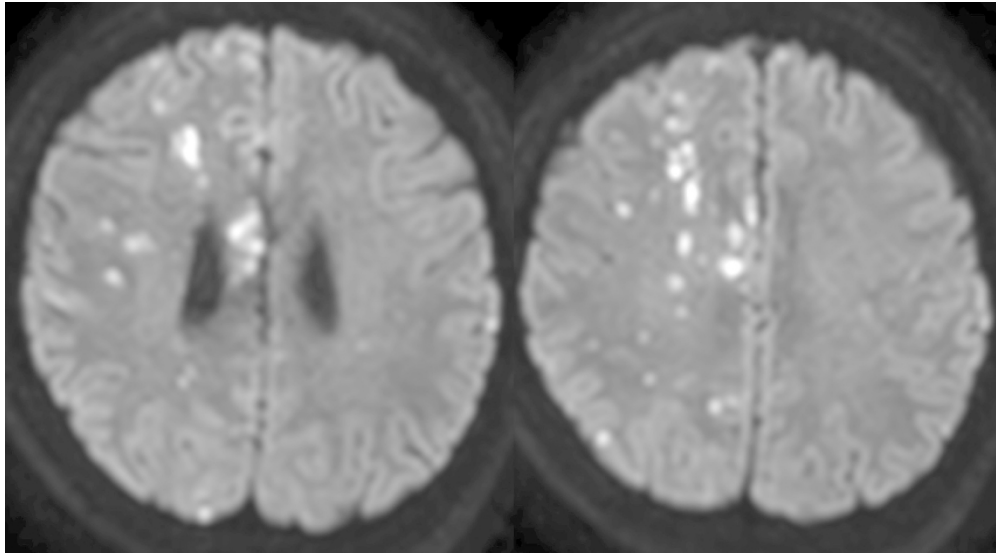


Fig.3

230x127mm (300 x 300 DPI)

Table 1

Year	Author	Sex	Age	clinical feature	Location	No.and Type of stent	Coil	Time to treatme	Antiplatelet drugs	Ischemic complicatio	Rerupture	Regrowth	mRS
(FD)													
2018	Lozupone et al.	F	52	SAH	A2	1 FD	No	3D	Abciximab →ASA	No	No	No	0
2016	Lin et al.	M	41	Unruptured	A2	2 FD	No	N/A	ASA +CLP	No	N/A	N/A	0
2016	Lin et al.	F	73	Unruptured	A1	1 FD	Yes	N/A	ASA +CLP	Yes	N/A	N/A	2
2016	Lin et al.	M	13	Gunshot injury	A2	1 FD	No	N/A	ASA +CLP	No	N/A	N/A	0
(NBS)													
2020 (Present case)		F	51	SAH	A1	2 NBS	Yes	1D	ASA +CLP	Yes	No	No	1
2018	Takahashi et al.	F	67	SAH	A2	1 NBS	Yes	15D	N/A	No	No	Yes	0
2016	Hensler et al.	M	46	Distal progression of dissection	A2	1 NBS	No	N/A	ASA +CLP	No	No	No	0
2015	Iwasaki et al.	M	36	Enlargement of pseudoaneurysm	A2	1 NBS	No	N/A	ASA +CLP	No	No	No	0
2014	Im et al.	M	56	SAH	A2	1 NBS	Yes	N/A	N/A	N/A	No	No	4
2013	Park et al.	M	37	cSAH, Enlargement of pseudoaneurysm	A2	1 NBS	Yes	N/A	N/A	No	No	No	0

cSAH: Cortical SAH, FD: Flow diverter, NBS:Neck bridge stent, N/A:Not available, ASA: acetylsalicylic acid, CLP: clopidogrel