

症例報告

生後 38 日の乳幼児破裂脳動脈瘤に対する コイル塞栓術の 1 例

荒川秀樹 村山雄一 石橋敏寛 結城一郎 野中雄一郎 見崎孝一
梶原一輝 西村健吾 菅 一成 青木 建 阿部俊昭

Coil embolization of ruptured posterior cerebral artery aneurysm in a 38 days-old infant

Hideki ARAKAWA Yuichi MURAYAMA Toshihiro ISHIBASHI Ichiro YUKI Yuichiro NONAKA
Kouichi MISAKI Ikki KAJIWARA Kengo NISHIMURA Issei KAN Ken AOKI Toshiaki ABE

Department of Neurosurgery / Center for Endovascular Neurosurgery, Jikei University Hospital

●Abstract●

Objective: Ruptured cerebral aneurysm is very rare in an infant. We present a case of ruptured posterior cerebral artery aneurysm in a 38-day-old boy.

Case presentation: The infant was brought to the emergency room suffering from lethargy, high grade fever, and subsequent dehydration due to poor oral intake. A head CT before performing lumbar puncture to rule out meningitis showed subarachnoid, intraventricular, and intracerebral hemorrhage, and a round mass in the interpeduncular and crural cisterns. Though MRI and MRA performed after transfer to our hospital could not confirm the mass as an aneurysm, a transfontanel Doppler study did confirm it by detecting the blood flow within. An aneurysm of the right posterior cerebral artery (PCA) was visualized on conventional angiography thereafter. The aneurysm and parent vessel of the PCA were successfully occluded using a simple coil embolization technique. Postoperatively the infant recovered almost completely, even though diffusion abnormalities were visible in the right occipital lobe on postoperative MRI. The patient was discharged 30 days after the procedure.

Conclusion: Ruptured infantile cerebral aneurysms are rare, and diagnosis is occasionally difficult. In similar rare cases, the success of management depends on maintaining the vigilance of the emergency management team to such a possibility, and the availability of appropriate facilities and skilled neurovascular surgeons.

●Key Words●

embolization, infantile aneurysm, transcranial doppler

東京慈恵会医科大学附属病院 脳神経外科・脳血管内治療部
<連絡先: 荒川秀樹 〒105-8461 東京都港区西新橋 3-25-8 E-mail: harakawa@jikei.ac.jp>

(Received February 26, 2013 : Accepted July 1, 2013)

緒言

乳幼児の破裂脳動脈瘤は、稀な疾患であり、その診断と治療に苦慮する場合がある。乳幼児動脈瘤は、成人例より比較的大型で、出血で発症する症例が多い。近年は脳血管内治療の進歩により、より低侵襲に治療を行うことが可能となってきたが、年齢の特殊性ゆえに、成人例

よりも考慮すべき点が多い。今回我々は、破裂脳動脈瘤の診断のもと、血管内手術によるコイル塞栓術を施行した乳児の 1 例を経験したので報告する。

症例呈示

患者：生後 38 日、男児。
主訴：発熱と機嫌不良。

既往歴：妊娠 37 週で、通常分娩にて出生。出生時体重 2,570 g、身長 45.5 cm、頭位 32.5 cm であった。患児は第一子であり、妊娠中の経過および生後の成長に問題はなかった。また、脳動脈瘤の家族歴を認めなかった。

現病歴：受診の前日より機嫌不良であった。受診当日に 38.8℃ の発熱を認め、哺乳不良となり、近医を受診した。髄膜炎を疑われたが、頭部 CT にて脳出血を認めたため、精査加療目的で当院へ転送となった。

現症：身長 48.8 cm、体重 3,625 g、頭位 36.5 cm。若干の活動性低下を認めたが、明らかな神経学的脱落症状を認めなかった。大泉門の軽度膨隆を認めた。

神経放射線学的所見：頭部 CT では、右基底核、第三脳室内ならびに迂回槽に血腫を認め、脳室の拡大を伴っていた。また、脳底槽に円形の腫瘍性病変を思わせる所見が認められた (Fig. 1)。頭部 MRI では、この病変の信号強度は heterogeneous であり、明らかな flow void を認めなかった (Fig. 2)。また MRA では、同病変は描出されなかった。この時点で、腫瘍性病変が動脈瘤であり、この破裂に伴う出血を来していることが強く疑われたが、確定診断のためだけに脳血管撮影を行うことは、侵襲が大きすぎると考えた。また、CT アンギオグラフィ (CTA) を施行することも考慮されたが、病変が動脈瘤であった場合には、引き続き血管内治療を行うことを勧告し、術前の造影剤使用は制限するべきと考え、見送った。小児科医と相談の上、大泉門経由での経頭蓋超音波検査を行ったところ、腫瘍性病変内への血流が捉えられたため、破裂脳動脈瘤と診断した (Fig. 3)。

血管内手術：全身麻酔導入後に、エコーガイド下に、4Fr Micropuncture introducer (Cook Medical, Bloomington, IN, USA) を用いて、右大腿動脈の穿刺を行い、4Fr sheath を留置した。ガイディングカテーテルは、先端が柔らかく、広い内腔を持つ 4Fr Cerulean G40 (メディキット、東京) を選択した。また、十分遠位までガイディングカテーテルを誘導することができない可能性もあったため、通常より短い、有効長 105 cm のものを使用した。これを 0.035" の Bentson wire (Cook Medical) を用いて、左椎骨動脈に誘導し、血管撮影を行った。この結果、右後大脳動脈 (posterior cerebral artery; PCA) の P1-2 segment に、MRI で認められた腫瘍性病変に相当する動脈瘤を認めた。Rotational angiogram の reconstruction image により、動脈瘤は PCA 自体が膨隆した fusiform aneurysm であり、PCA

を挟んで上下に sac を形成していることが明らかとなった (Fig. 4)。出血の分布からは、上方の sac が出血源としての bleb ないしは pseudoaneurysm と考えられた。Excelsior SL-10 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) を Chikai 10 (朝日インテック、愛知) を用いて、下方へ突出する sac 内へ誘導し、同部位の塞栓から開始した。続いて bleb とされる上方の sac、ならびに動脈瘤遠位の PCA の閉塞を行った。最終的に Matrix 2 および Target coil (Stryker) を計 21 本使用し、完全閉塞を得た (Fig. 5)。右 PCA は、右内頸動脈撮影での後交通動脈を介した経路からも造影されることなく、完全閉塞していると考えられた。最終的な造影剤使用量は、計 23 mL であった。穿刺部は約 15 分の用手圧迫により止血を行った。この後に、急性水頭症に対して、右前角穿刺による脳室ドレナージ術を行い、手術を終了した。

術後経過：翌日の頭部 MRI diffusion weighted image では、右後頭葉に高信号域を認めた (Fig. 6)。第 3 病日に抜管し、徐々に哺乳量も増加し、順調に経過した。脳室ドレナージに起因する髄膜炎を併発したが、抗生剤投与にて軽快した。第 19 病日にドレナージを抜去し、大泉門の膨隆が出現しないことを確認した後に、第 30 病日に明らかな神経学的脱落症状なく自宅退院となった。11ヵ月後の外来受診時には、視野の評価は不可能なものの、全方向への追視を認め、発達も正常範囲内であった。MRI 上は、右後頭葉中心の萎縮とこれに伴う脳室拡大の所見が認められたが、MRA では動脈瘤の描出は認められなかった。

考 察

乳幼児の動脈瘤は、非常に稀とされ、18 歳以下の小児例は全年齢の 0.17-4.6% 程度と報告されており、1 歳以下での発症は極めて低い²⁾。出血での発症が多く Buisらの review でも 73% で何らかの出血を認めたと報告されている²⁾。男女比については男児に多いという報告があるが^{5,6)}、破裂瘤のシリーズでは女児に多かったという報告もあり、一定はしていない¹¹⁾。好発部位に関しても、内頸動脈先端部に多いという報告もあるが、中大脳動脈分岐部に多いとの報告もある。中大脳動脈瘤に関しては、感染性動脈瘤との関連も推測されている。約 1/4 程度の症例が、後方循環に発生すると報告されている^{1,9,11)}。動脈瘤のサイズに関しては、成人と比較して大型であることが多いとされており、本症例は乳幼児脳動

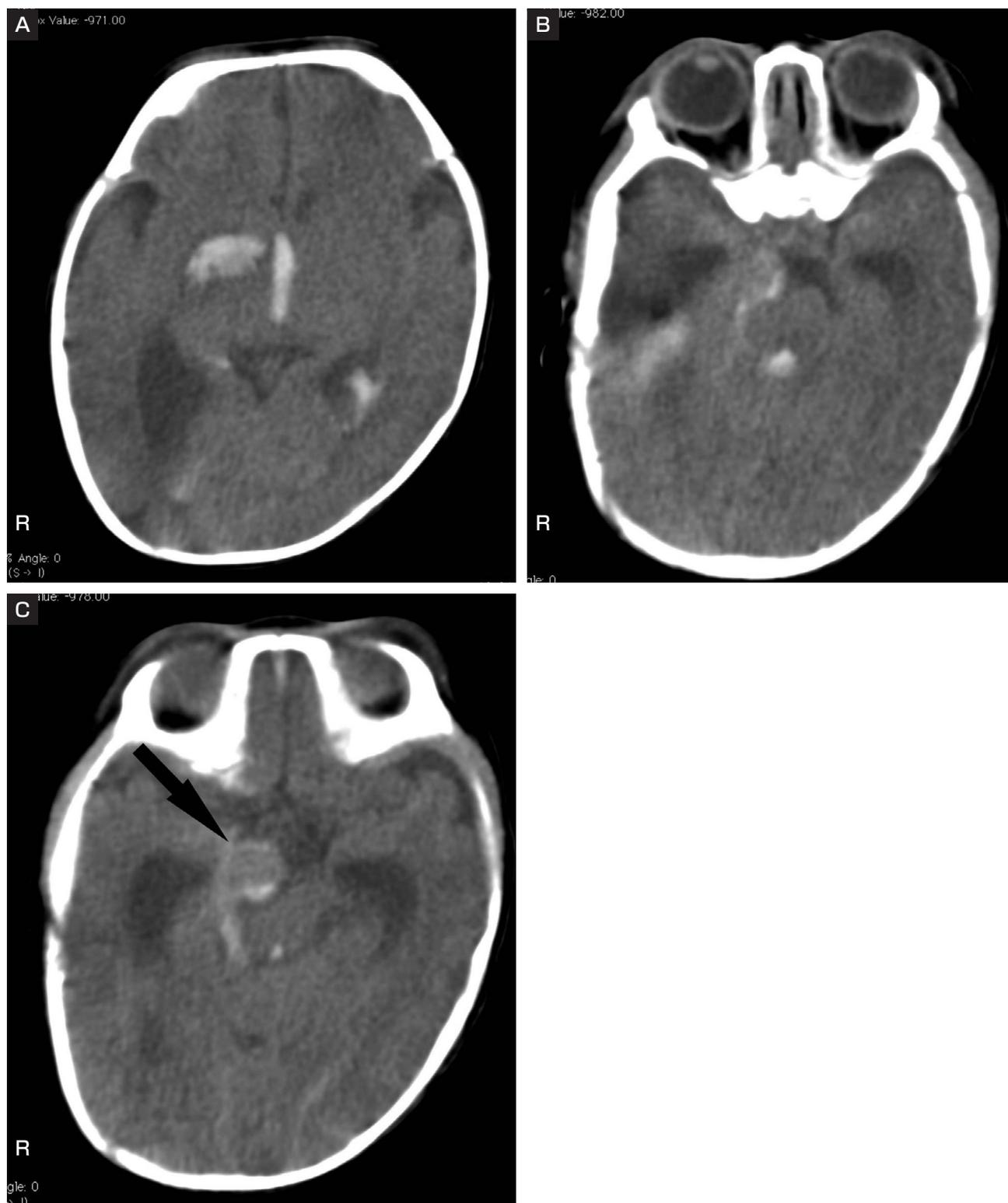


Fig. 1

A : Initial head CT scan shows an intracerebral hemorrhage at the right basal ganglia and intraventricular hemorrhage (IVH) within the third ventricle.

B : A subarachnoid hemorrhage is noted predominantly in the right basal cistern and IVH is noted within the fourth ventricle.

C : A round lesion is apparent in the right crural cistern (arrow).

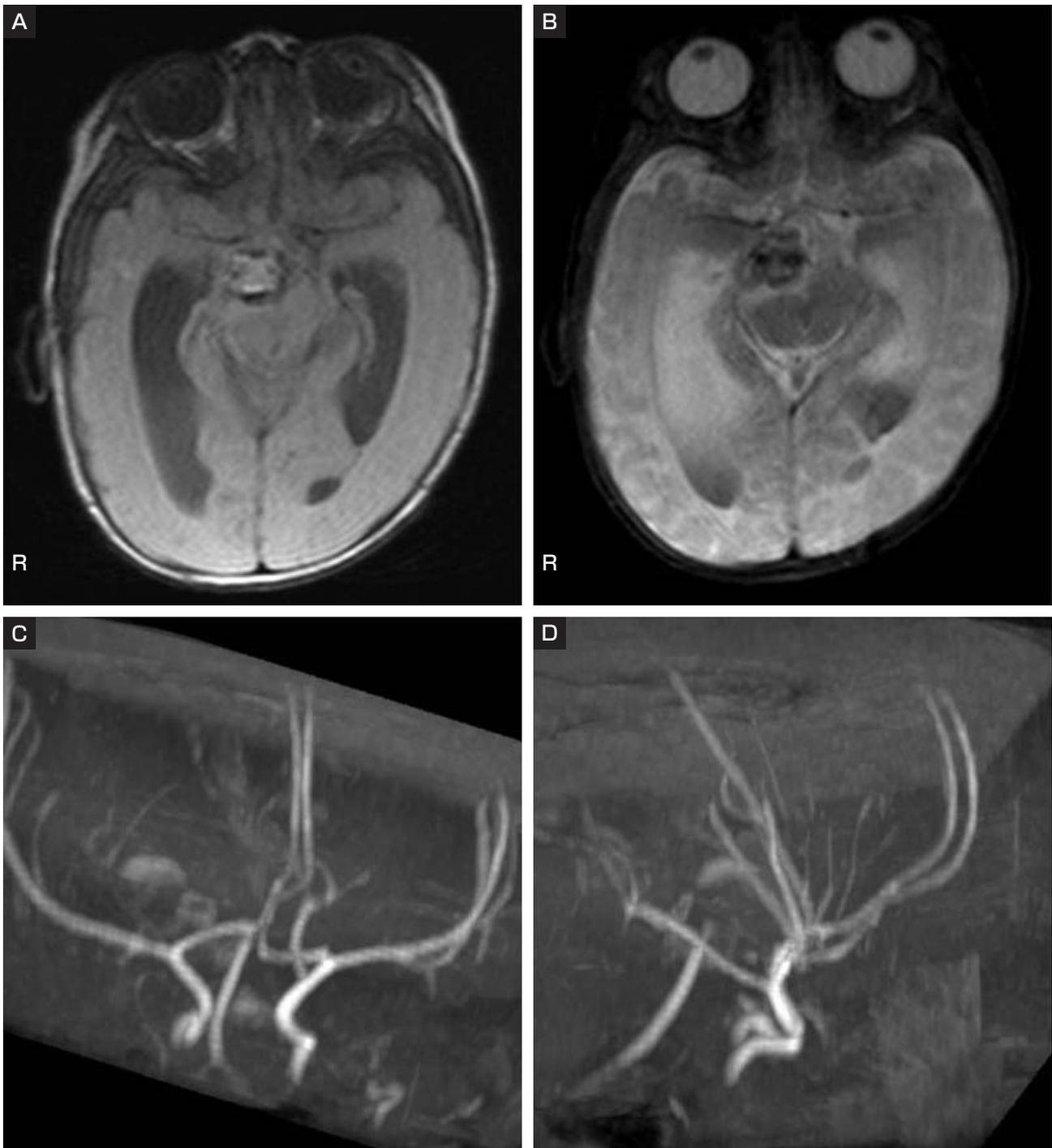


Fig. 2
The round lesion has a high intensity on fluid-attenuated inversion recovery image (A) and a mixed intensity on T2 weighted image (B). The lesion is not clearly identified on time-of-flight MRA (C,D).

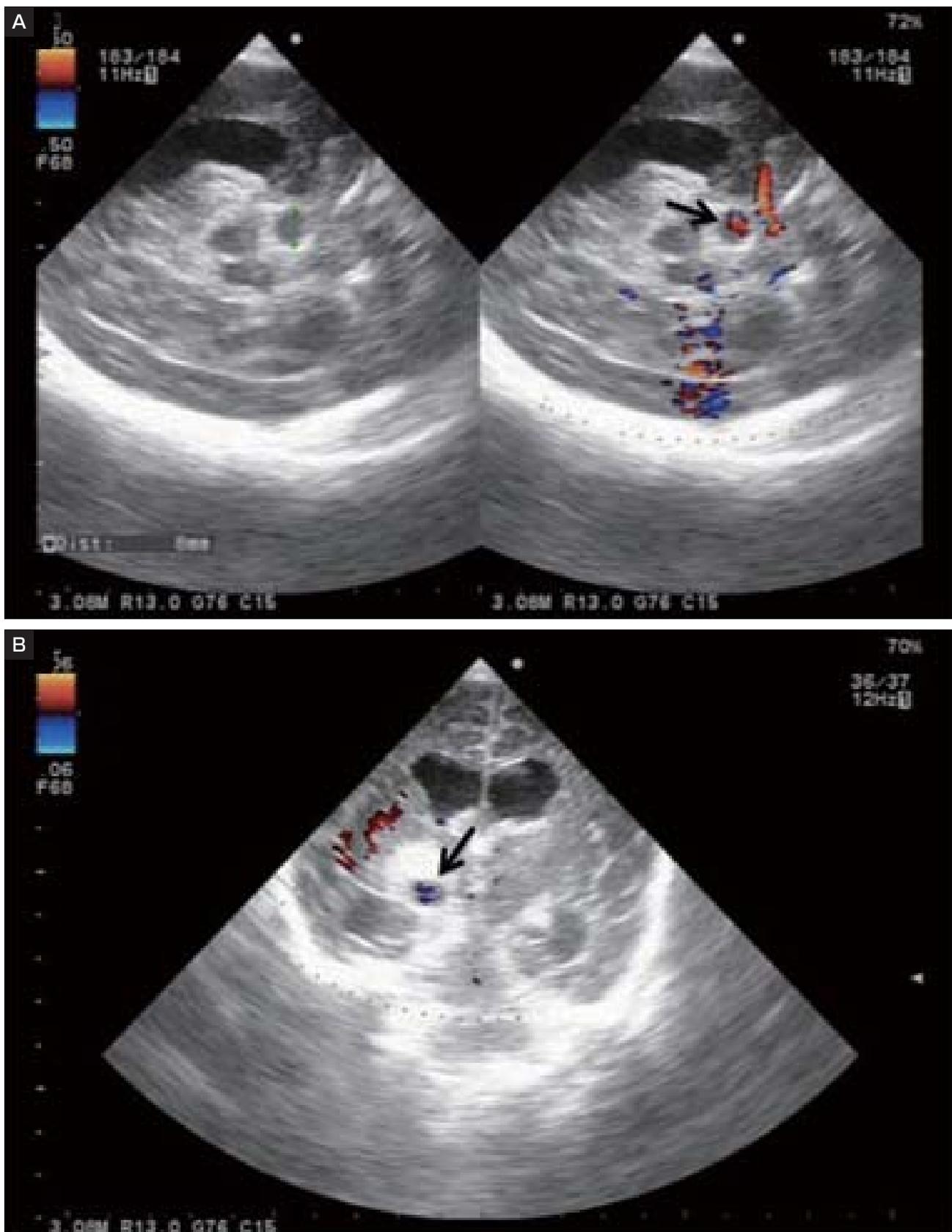


Fig. 3
Sagittal (A) and coronal (B) views of a transfontanellar Doppler before the embolization show blood flow into the round mass (arrow).

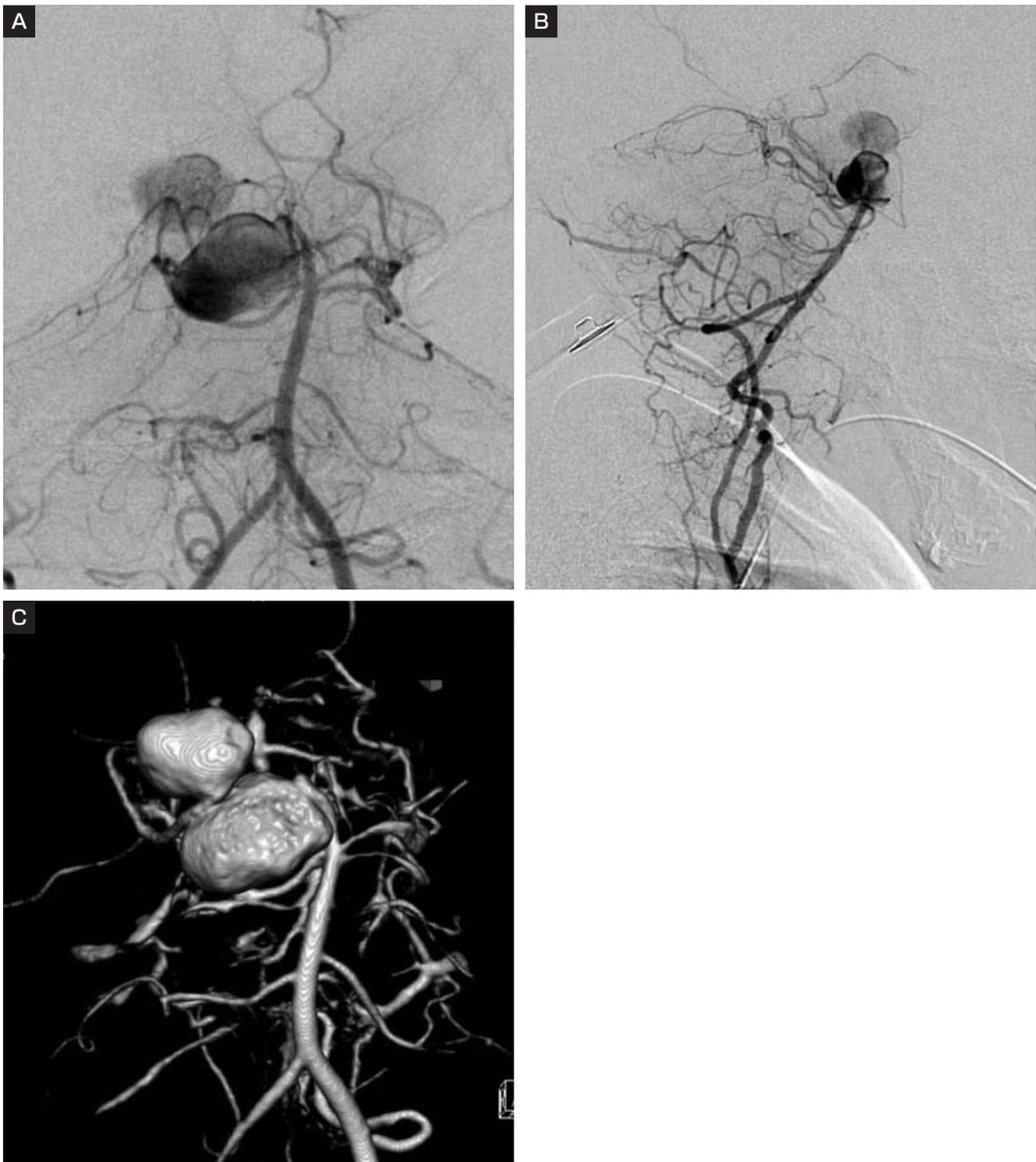


Fig. 4
Pre-embolization angiograms of the left vertebral artery (A : anteroposterior view, B : lateral view) show bilobular large aneurysm of the right posterior cerebral artery (PCA).
C : A three-dimensional reconstruction of the rotational angiography image delineates two components of the aneurysm projecting superiorly and posteriorly from the PCA itself.

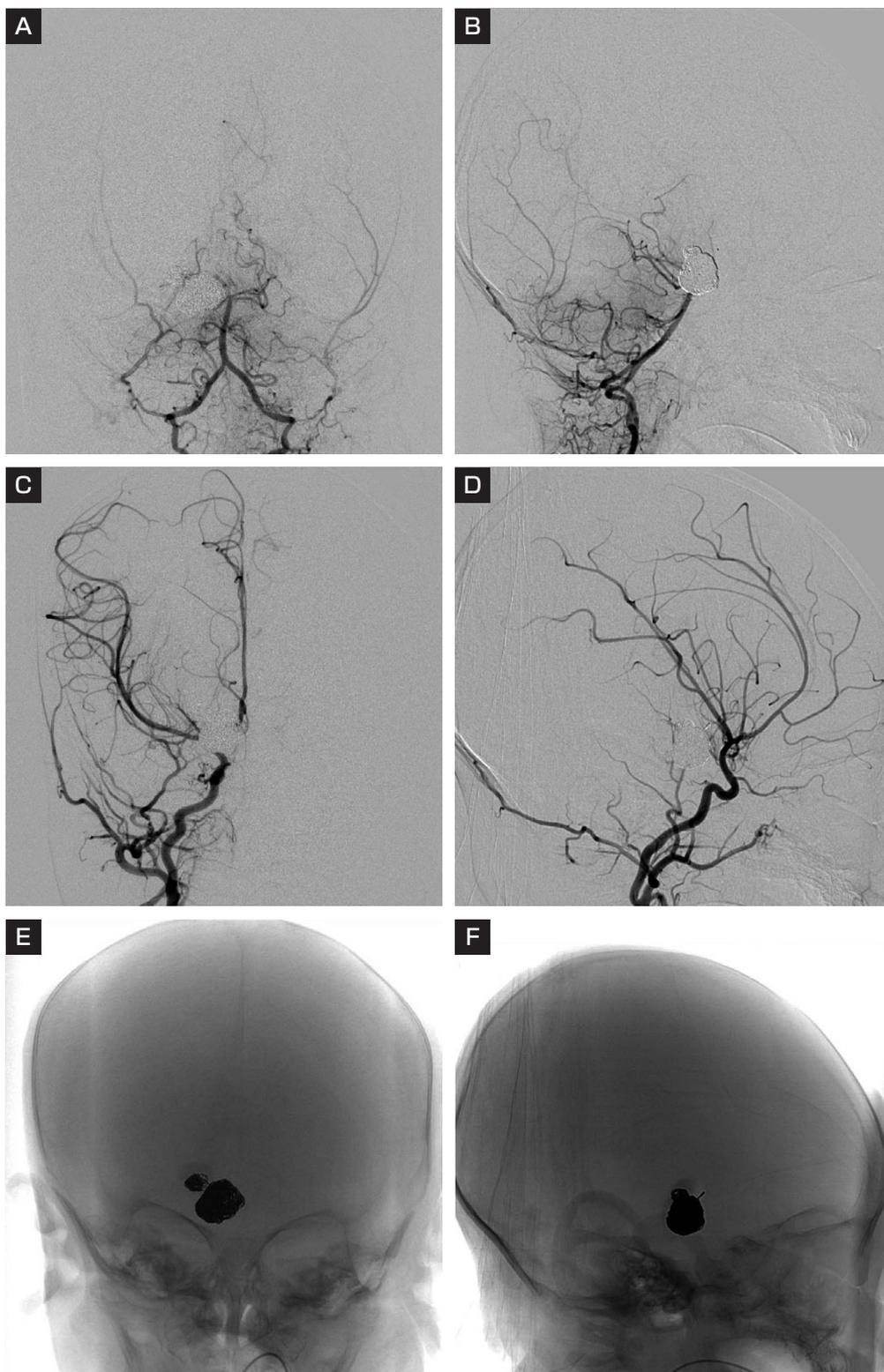


Fig. 5
Post-embolization angiograms of left vertebral artery (A : anteroposterior view, B : lateral view) and right common carotid artery (C : anteroposterior view, D : lateral view) show complete obliteration of the aneurysm. The right posterior cerebral artery distal to the aneurysm is not shown. Post-embolization craniograms (E : anteroposterior view, F : lateral view) show two separate coil masses, which represent the bilobulated shape of the aneurysm.

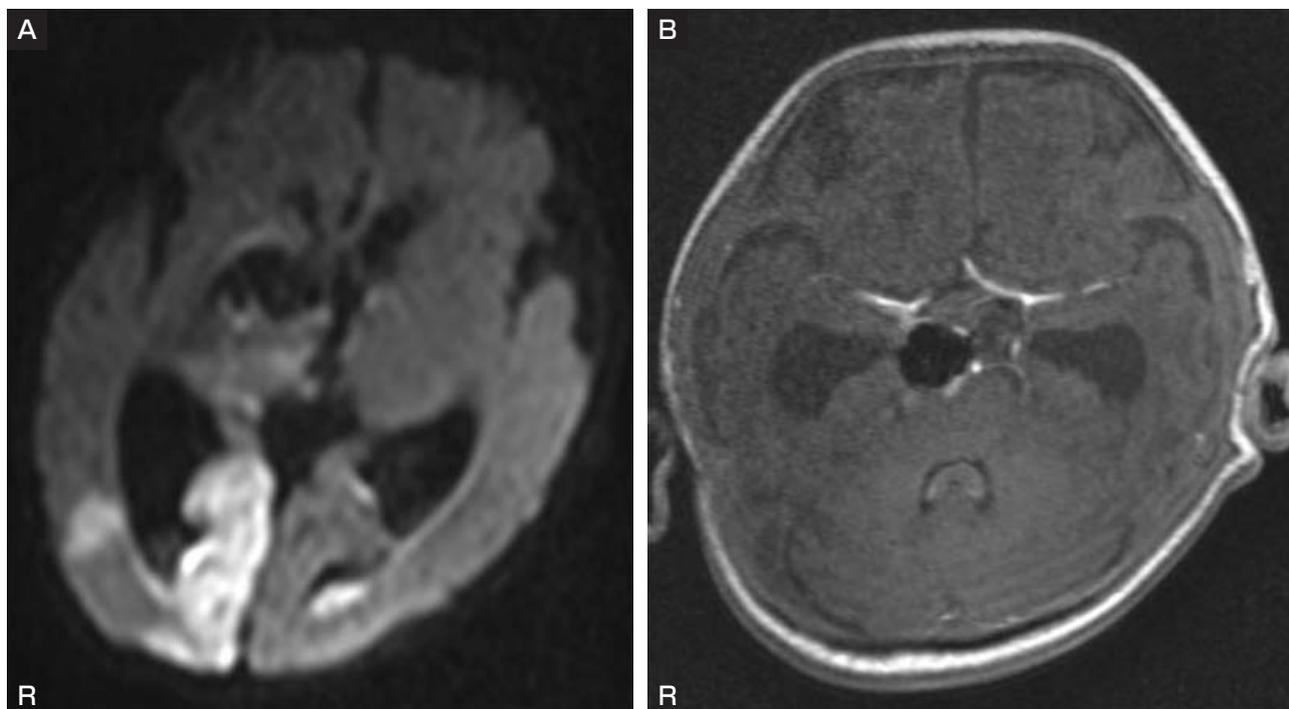


Fig. 6 Postoperative MRI shows a high intensity signal on diffusion weighted image in the right occipital lobe (A), but no flow signal within the aneurysm on a time-of-flight sequence (B).

脈瘤としては比較的典型的であると言える^{7,9)}。原因としては、感染、外傷、先天性の血管壁欠損や結合組織代謝異常の関連などが挙げられている⁷⁾。

治療法としては、成人と同様に開頭クリッピングないしは、血管内治療が選択される。血管内治療に関しては、低侵襲であるという点は成人例と同様に利点としてあげられるが、特に小児例に施行した際の長期的な成績についての懸念があり、その優位性についての結論は出ていない⁸⁾。本症例においては、乳児であったことに加え、当施設における血管内治療ファーストの方針に則り、塞栓術を選択した。治療オプションとして、①ステント併用の動脈瘤塞栓術、②PCAのsacrificeを前提とした瘤内塞栓が考えられた。出血発症であったことや、乳幼児に対するステントの安全性が確立していないこと、放射線照射量や造影剤使用量の制限、対象血管の血管径のことを考慮し、よりシンプルに根治を行うべきと考え、②を選択した。この際のPCA閉塞に伴う視野欠損は、長期的には日常生活で順応できる可能性があると考えた。視野障害についての評価は、現段階では年齢的に不可能であり、今後の長期的なフォローを要する。

1. 診断

MRI/MRAによる動脈瘤の評価は、近年では3T MRIの登場に伴い、その感度および特異度の非常に高い有用なツールであることが報告されている³⁾。しかしながら、Time of Flight (TOF)法を用いたMRAにおいては、turbulent flowや動脈硬化などによるsignal lossなどにより、動脈瘤の描出に関して、false negativeとなることがあり得る。本動脈瘤は、血管撮影の結果、大型脳動脈瘤によく見られる、動脈瘤内の造影剤の滞留が著明であった。特に、動脈瘤の形成部位が、後交通動脈と後大脳動脈の合流部近傍であり、両者からの流入血によるturbulent flowが起こりやすい環境にあったことも、signalの減弱の原因と考えられる。

本例の動脈瘤の確定診断には、大泉門を介した経頭蓋超音波 (transfontanelar doppler) が有用であった。transfontanelar dopplerは、1990年代にある程度確立した検査法として報告されており、これにより新生児脳室内出血や水頭症、低酸素脳症などの診断に加え、血管奇形を含めた血管の形態を評価することが可能である⁴⁾。成人であれば、MRIで診断が確定できない場合に、診断を目的とした血管撮影を行うというプロセスは許容さ

れるが、小児例においては、診断のみを目的として血管撮影を行うことは、決して好ましいとは言えない。こうした状況において、小児科医との連携により、本検査により病変を正確に評価することができたことは、その後の治療をスムーズに行う上で、不可欠であった。

より詳細に血管の評価を行う目的でCTAを施行することも考慮したが、CTAで動脈瘤の診断が確定した場合、引き続き塞栓術を行う際の造影剤用量に、さらなる制限を加えざるを得なくなると考え、本症例においてCTAは施行しなかった。

2. 治療戦略

塞栓術に先立って行った血管撮影の所見上、特に上方のsacの造影剤滞留を認め、同部位がrupture siteと考え、MRIで瘤内部の信号強度がheterogenousであることと併せて、瘤内の部分血栓化が疑われた。このことから、塞栓術に際しては、瘤内からの血栓飛散による遠位塞栓のリスクも考慮された。本例においては当初より、将来的なretrograde flowによるrecanalizationを予防する目的で母血管閉塞の併用を計画していたため、遠位PCAを先に塞栓できれば、リスク軽減を図れたと思われる。しかし、瘤内の処置を行わずに遠位閉塞を行った場合には、瘤内圧上昇に伴う再破裂の危険性もあると考え、本症例においては、特に血栓化の可能性の低い下方のsacの閉塞をまず行った。上方のsacへのコイル留置前に遠位PCAの塞栓を行ったが、幸い動脈瘤の破裂をきたすことはなかった。術後のcraniogramで確認されたcoil massは、術前に造影されていた動脈瘤より明らかに小さく、壁の血栓化が術中にも進行したことが示唆された。

また、塞栓術後の血管撮影所見上は、中大脳動脈からのleptmeningeal anastomosisを介した遠位PCAの描出は認められなかったことから、術後脳梗塞の主な原因は、瘤内からの血栓飛散によるembolic infarctionよりはhemodynamic infarctionの要素が強いと思われた。

3. 治療デバイス

体重10 kg以下の症例においては、診断カテーテルに3Frシステムを用いることが推奨されているが¹⁰⁾、一般的には4Frシステムが使用されることが多く、本例においても、4Frシステムを選択した。小児例の血管内治療において、最も苦勞するのは、アクセスルートの確保と言っても過言ではないが、超音波ガイド下にMicropuncture systemを用いることで、安全にアクセス

ルートを確保することが可能であった。高齢成人CAS(carotid artery stenting)症例などの、アクセスに難渋する症例においても、このようなデバイスは有効であり、使用法に慣れておくことは重要であると思われた。

ガイディングシステムの選択に際して、ロングシースを椎骨動脈まで誘導して、ガイディングシースとして用いる方法も有効であったと思われる。しかし、硬いシースを留置することによる、血管解離や攣縮による影響が懸念されたため、より柔らかく、atraumaticなカテーテルを選択し、4FrのCerulean G40をガイディングカテーテルとして使用した。Cerulean G40を使用するデメリットとして、長さが120 cmと長く、身長小さい乳児に使う際には、操作性が悪くなることが挙げられる。しかし、今回有効長105 cmのカテーテルを準備できたことで、問題なく手技を施行することができた。また、マイクロカテーテルを挿入した際の造影も問題なく行うことができた。

4. 造影剤

造影剤腎症の予防などの観点から、小児における造影剤用量に関しては厳格に管理をしなければならぬ。Societies of Interventional Radiologyのガイドラインでは、新生児においては、4-5 mL/kg、乳幼児以降では6-8 mL/kgが最大量とされている¹⁰⁾。本患児は体重3.7 kgであり、術前に26 mLを限量と設定し、造影ごとに用量をカウントした。Rotational angiographyは、最も用量が増える場面ではあるが、hand injectionを行うことにより、約5 mLで十分な3D reconstruction画像を得ることができた。また、術式として母血管閉塞を選択したことにより、術中の造影回数を軽減させることができ、最終的には計23 mLの造影剤使用で手技を終了することができた。造影回数が多くならざるを得ない場合には、造影毎にカテーテルのデッドスペース内の造影剤を吸引することなども考慮される。

5. 放射線被曝

小児は、成人と比較して放射線に対して感受性が高いことが知られており、成人症例以上に気を配る必要がある。放射線技師との協力による、適切なフィルターの併用や、パルスレートを下げるなどの工夫は、通常成人例と同様であるが、撮影回数の軽減やRoadmapの使用などは、術者の判断の範疇であり、造影剤量とともに術中の透視量の確認を適宜行うべきと思われる。本症例における照射量は、計算値ではあるが840 mGyであった。

結 語

日齢 38 日の乳幼児の破裂脳動脈瘤によるくも膜下出血症例に対して、コイル塞栓術を施行した 1 例を経験した。小児脳動脈瘤は非常に稀な疾患であり、診断と治療に関して、さまざまな知識と工夫を要する。本例においては transfontanelar doppler が、診断に有用であった。また、適切なデバイス選択、術中の造影剤や放射線被曝の低減などに関して、文献的考察を加えて報告した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

文 献

- 1) Agid R, Souza MP, Reintamm G, et al: The role of endovascular treatment for pediatric aneurysms. *Childs Nerv Syst* **21**:1030-1036, 2005.
- 2) Buis DR, Meijer OW, van den Berg R, et al: Clinical outcome after repeated radiosurgery for brain arteriovenous malformations. *Radiother Oncol* **95**:250-256, 2010.
- 3) Chen YC, Sun ZK, Li MH, et al: The clinical value of MRA at 3.0 T for the diagnosis and therapeutic planning of patients with subarachnoid haemorrhage. *Eur Radiol* **22**:1404-1412, 2012.
- 4) Couture A, Veyrac C, Baud C, et al: Advanced cranial ultrasound: transfontanelar Doppler imaging in neonates. *Eur Radiol* **11**:2399-2410, 2001.
- 5) McDonald CA, Korb M: Intracranial aneurysms. *Archives of Neurology and Psychiatry*, 1939.
- 6) Meyer FB, Sundt TM Jr, Fode NC, et al: Cerebral aneurysms in childhood and adolescence. *J Neurosurg* **70**:420-425, 1989.
- 7) Proust F, Toussaint P, Garnié J, et al: Pediatric cerebral aneurysms. *J Neurosurg* **94**:733-739, 2001.
- 8) Roach ES, Golomb MR, Adams R, et al: Management of stroke in infants and children: a scientific statement from a Special Writing Group of the American Heart Association Stroke Council and the Council on Cardiovascular Disease in the Young. *Stroke* **39**:2644-2691, 2008.
- 9) Sanai N, Quinones-Hinojosa A, Gupta NM, et al: Pediatric intracranial aneurysms: durability of treatment following microsurgical and endovascular management. *J Neurosurg* **104**:82-89, 2006.
- 10) Heran MK, Marshalleck F; Society of Interventional Radiology Standards of Practice Committee; Society of Pediatric Radiology Interventional Radiology Committee, et al: Joint quality improvement guidelines for pediatric arterial access and arteriography: from the Societies of Interventional Radiology and Pediatric Radiology. *Pediatr Radiol* **40**:237-250, 2010.
- 11) Stiefel MF, Heuer GG, Basil AK, et al: Endovascular and surgical treatment of ruptured cerebral aneurysms in pediatric patients. *Neurosurgery* **63**:859-865 2008.

要 旨

JNET 7:162-171, 2013

【目的】 乳幼児期の脳動脈瘤は、稀な疾患である。我々は、活動性低下と発熱で発症した乳児破裂脳動脈瘤を経験したので報告する。**【症例】** 生後 38 日の乳児が、発熱と活動性低下で救急外来を受診。頭部 CT にて、くも膜下出血、脳室内出血、脳出血とともに、基底槽に円形の腫瘍性病変を認めた。MRI および MRA で確定診断がつかず、経頭蓋超音波検査で脳動脈瘤の診断となり、血管内治療を施行した。**【結論】** 稀な乳児破裂脳動脈瘤に対し血管内治療を行い、良好な結果を得た。