症例報告

初回破裂時には明らかでなかった破裂微小脳動脈瘤からの
再出血に対する血管内手術

百次 仁 島 袋 洋 嘉手苅 勤^{*1}
國吉 毅^{*1} 大兼 剛^{*2}

Endovascular Treatment for Recurrent Subarachnoid Hemorrhage from the Ruptured Small Aneurysm
not clearly seen at the First Rupture

by

Jin Momoji, M.D., Hiroshi Shimabukuro, M.D., Tsutomu Kadekaru, M.D.^{*1},
Tsuyoshi Kuniyoshi, M.D.^{*1}, and Tsuyoshi Ookane, M.D.^{*2}

from

Department of Neurosurgery, Naha City Hospital,

^{*1}Department of Neurosurgery, Nanbu Tokushukai Hospital, and

^{*2}Department of Radiology, Nanbu Tokushukai Hospital

We present a case of recurrent subarachnoid hemorrhage (SAH) attributed to rupture of an aneurysm which was not treated because it was not clearly seen on angiography at the first SAH.

A 67-year-old woman presented with consciousness disturbance (Hunt & Kosnik grade IV) and left hemiparesis. A CT scan revealed massive SAH (Fisher group 3). Angiography showed a 5mm right carotid cave aneurysm and a bulging at the posterior communicating artery origin which was thought to be an infundibular dilatation. Embolization for the carotid cave aneurysm was successfully performed. Sudden consciousness disturbance occurred 7 days after embolization, and CT scan revealed recurrent SAH. Because of severe brain swelling due to vasospasm, the patient was treated conservatively. After a ventricle-peritoneal shunt was performed for normal pressure hydrocephalus, the patient recovered but had a left hemiparesis.

Angiography obtained two months after embolization showed complete occlusion of the previously embolized aneurysm, and the enlarged aneurysm thought to be an infundibular dilatation, previously. Both episodes of SAH were considered to be attributed to this aneurysm. Because it was a very small aneurysm, endovascular treatment was considered extremely difficult and dangerous. But at the request of her family, we performed endovascular embolization of aneurysm successfully. Postoperative course of the patient was uneventful.

We stressed that early follow-up angiography is very important even after successful occlusion of small carotid cave aneurysms because small carotid cave aneurysms tend not to rupture and another aneurysm which was unclear at the first angiography may appear clearly, after a while as in to our case.

(Received February 17, 2003 ; accepted October 27, 2003)

Key words : endovascular treatment, Guglielmi detachable coil, recurrent subarachnoid hemorrhage,
carotid cave aneurysm, follow-up angiography

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 13 : 401-406, 2004

^{*1}那覇市立病院脳神経外科／〒902-8511 那覇市古島 2-31-1 (連絡先: 百次 仁)

Address reprint requests to : Jin Momoji, M.D., Department of Neurosurgery, Naha City Hospital, 2-31-1 Furujima, Naha-shi, Okinawa 902-8511, Japan

^{*2}南部徳洲会病院脳神経外科

^{*3}南部徳洲会病院放射線科

Fig. 1 Upper row: CT scan obtained after admission showed a thick subarachnoid hemorrhage.
Lower row: CT scan obtained after first embolization and intrathecal administration of UK showed a slight residual hematoma in the right insular cistern.

Fig. 2 Angiogram before (upper row) and after (lower row) first embolization
Carotid cave aneurysm was occluded completely.

はじめに

近年の血管内手術の発達により、急性期のクモ膜下出血（以下、SAH）症例にも脳動脈瘤瘤内塞栓術が行われることが多くなった。最小限の侵襲で再破裂を予防し、早期に離床が図れるため、きわめて有望な治療法である。しかし、塞栓術の成功後も再出血をきたす症例が稀にある。今回、われわれは初回出血時の血管撮影で真の破裂動脈瘤が確認できずに合併した未破裂動脈瘤を塞栓し、処置を行わなかった真の破裂動脈瘤が1週間後に再出血したきわめて稀な症例を経験した。多発性動脈瘤症例への血管内手術の適用、限界などについて検討したので報告する。

症 例

患 者：67歳、女性。特記すべき既往歴、家族歴なし。
現病歴：2001年7月6日、クモ膜下出血（SAH）で発症し、近医に搬送された。意識レベルはJCS 100, Hunt

& Kosnik grade IVで左片麻痺を呈していた。頭部CTではFisher group 3のSAHが認められた（Fig. 1 上段）。同日の血管撮影で右内頸動脈（C 2-3 portion, carotid cave）に内側向きの約4×5 mmの囊状動脈瘤が認められた（Fig. 2 上段）。また、後交通動脈分岐部にもわずかに膨らみが認められたが、漏斗状拡大と判断された。手術的困難さ、患者のレベル（grade IV）、また家族の希望から当院にcarotid cave動脈瘤の塞栓術を依頼され、7月7日に施行した。

第1回血管内手術：全身麻酔下にて右大腿動脈に6Fr. sheathを穿刺し、6Fr. guiding catheterを右内頸動脈に留置した。先端を3次元的に蒸気で形成した10 sizeのmicrocatheterを、GT guidewire（TERUMO）で瘤中央部へ誘導した。Guglielmi detachable coil（GDC）4 mm×6 cmから計8本、40 cm挿入し、完全閉塞で終了した（Fig. 2 下段）。

術後経過：脳血管攣縮の予防目的に術直後からアルガトロバン、オザグレルナトリウムなどを使用し、翌日から腰椎ドレーナージよりウロキナーゼ（UK）6万単位を3日間投与した。7月8日には、ほぼ意識清明でJCS 1、

Fig. 3 CT scan after second rupture of aneurysm showed vague hematoma and a small low density area in the right insular portion.

GCS 15 に回復した。7 月 10 日には CT 上、右 insular cistern のみに SAH が残存した (Fig. 1 下段)。7 月 14 日、意識レベルが JCS 100 まで低下し、左片麻痺が出現した。CT では右の carotid cistern に SAH、中大脳動脈領域に一部低吸収域が認められた (Fig. 3)。SAH は塞栓部位の周囲ににじみ出る程度の少量で、意識レベルも低かったので、止血剤を投与し、経過観察した。その後、脳血管攣縮の進行に対し、高気圧酸素療法も追加された。術後約 1 カ月ごろに正常圧水頭症を呈したため、8 月 21 日に脳室腹腔短絡術を施行し、意識レベルは改善した。

9 月 4 日の follow-up の血管撮影で前回塞栓した動脈瘤のコイルの形は変化なかったが、わずかに認められた右内頸動脈後交通動脈分岐部の膨らみが、L 字状に約 2×4 mm と明らかに増大していたので、2 度の出血は同部の破裂によるものと考えられた (Fig. 4 中)。病変がきわめて小さく、血管内手術は困難であることを説明しても意識清明となった患者本人も家族も開頭術を拒否し、初回到成功した血管内手術を強く希望した。主治医は苦渋の選択を迫られ、最終的に血管内手術を 9 月 13 日に施行した。

第 2 回血管内手術：全身麻酔下にて右大腿動脈に 7Fr. sheath を穿刺し、7Fr. guiding catheter を右内頸動脈に留置した。2 回目の手術は瘤がきわめて小さく、すでに 2 度破裂していると考えられたので、術中破裂の危険性が高いこと、また前交通動脈を介する右前大脳動脈への対側からの側副血行は良好で、右大脳半球中大脳動脈領域はすでに広範な梗塞を呈していることもあり、破裂した場合には内頸動脈の一過性の遮断、最悪の場合には永久的な閉塞も辞さないつもりで、あらかじめ microballoon catheter を瘤遠位部、内頸動脈終末部に留置した。10 size

の microcatheter を GT guidewire 90° で誘導し、瘤内へ誘導した。慎重に guidewire を操作し、microcatheter 先端を瘤の奥にうまく留置し得た。GDC 10 soft, $2 \text{ mm} \times 2 \text{ cm}$ を 2 本留置した。新たに認められた瘤の増大部分は造影されなくなったので、手技を終了した (Fig. 4 右)。

術後経過：術後はアルガトロバンを血栓塞栓症予防に使用し、続いて抗血小板薬の内服で特に問題なく経過した。11 月 22 日の血管撮影で 2 個の動脈瘤とも変わりなく閉塞を確認した (Fig. 5)。左片麻痺を残したが Glasgow outcome scale の moderately disabled の状態で施設に移った。術 1 年後も特に変わりなく生活している。

考 察

破裂脳動脈瘤の治療において近年の血管内手術の発展により、良好な成績が報告されるようになった¹⁰⁾。しかし、初回出血時の塞栓術成功後も再出血をきたす症例がある。その原因は大きく 2 つに分けられ、①瘤の再増大や coil compaction により初回出血部位から再出血する場合、②塞栓した動脈瘤とは別の動脈瘤から出血する場合である。後者はさらに 1) 初回出血後の最初の血管撮影で真の破裂動脈瘤が確認できず、未破裂動脈瘤を塞栓し、処置を行わなかった真の破裂動脈瘤から再出血する場合、2) 破裂動脈瘤を塞栓したが、未破裂動脈瘤が後に破裂する場合が考えられる。

本例は初回血管撮影では漏斗状拡大と思われた後交通動脈分岐部が再破裂後の血管撮影で拡大しており、かつ前回の塞栓部位は変化がなかったので、後交通動脈分岐部が真の破裂部位であると判断し、後者②の 1) と考えられた。文献を渉猟し得たかぎりでは、このような症例

Fig. 4 Serial angiogram

Upper row : anteroposterior view **Lower row :** lateral view
Left : after first embolization **Center :** before second embolization
Right : after second embolization

The internal carotid posterior communicating aneurysm was enlarged and occluded completely. The posterior communicating artery was preserved.

Anteroposterior view

Lateral view

Fig. 5 Follow-up angiogram 10 weeks after second embolization
 Both aneurysms were occluded completely.

の報告は認められなかったが、臨床上、十分にあり得るケースであり、破裂動脈瘤にも血管内手術の適応がますます広がっていくなかで、注意を喚起すべく報告した。

SAH で発症した症例において血管撮影で明らかな囊状動脈瘤が 1 個認められた場合、出血の部位と一致すればまずそこが出血源と考えられるが、血管内手術の場合は、直接動脈瘤近傍の状態をみることができないので、本例のようにたまたま同時に存在した未破裂動脈瘤を処置してしまい、破裂動脈瘤を放置してしまう危険性が生じる。本例で初回治療で直達手術を施行していたとしても、破裂部位にはおそらく wrapping しかできなかったと思われるが、両動脈瘤とも処置できる点では直達手術の優位性を示すものであり、血管内手術の限界を認めざるを得ない。しかし、たとえば CT 上、血腫が左右均等にあり、両側の内頸動脈に複数の動脈瘤が認められる場合などでは破裂部位が特定困難であり、血管内手術の方が、一期的に治療しやすいという優位性もある⁸⁾。

本例のような小さな動脈瘤は血管内手術手技による破裂の危険性が高く⁴⁾、その場合、動脈瘤そのものが吹き飛んでしまい、塞栓術の継続が困難な状態になる危険性もあり、guidewire や catheter の操作は、通常の何倍も注意して破裂を予防しなければならない⁶⁾⁷⁾。そのためには高解像度の biplane の血管撮影装置を使用し、場合によっては microballoon catheter で親動脈の一時的、さらには永続的な遮断も行える準備が必要と思われる。

本例に対する 2 回目の血管内手術については、非難も多々あると思われるが、患者の開頭術拒否の場合に仕方なく選択されることもあるのではなかろうか。本例は minor leak ながら再出血をきたしており、出血源に対する処置は不可欠と考えられた。しかし、意識清明となった患者自身とその家族に開頭術を拒否され、次の選択肢としてかろうじて承諾を得られたものであり、主治医として苦渋の選択であったと思われる。そこで血管内手術が可能かどうか当院にコンサルトされた。その時点で開頭術の適応を再度検討していただいたが、患者の同意がどうしても得られないとのことで、われわれもやむなく血管内手術に踏み切ることにしたものである。このように血管内手術が非常に困難と考えられても施行せざるを得ない場合には、最悪の場合を想定して、前述のように十分な準備をしておくことが重要と思われた。

また、carotid cave の動脈瘤については直達手術の困難さのため、血管内手術のよい適応とされている¹⁾⁹⁾。しかし、carotid cave の動脈瘤は、他の動脈瘤の破裂時などに偶然発見される未破裂動脈瘤が多く、また、小さな動脈瘤の破裂率は低いとされている¹⁾³⁾。Thornton ら⁹⁾が治療

した paraclinoid の動脈瘤は 71 個中、以前の出血 4 個を含めて 17 個 (23.9%) のみが破裂動脈瘤であった。Nutik³⁾の報告では 17 個中 4 個のみが破裂動脈瘤で、それらはすべて 10 mm 以上であった。Roy ら⁵⁾は 13 個中 10 個が偶然発見され、3 個の破裂動脈瘤のうち 2 個が小さな動脈瘤であったが、正確な大きさの記載はなかった。自験例では 16 例中長径 10 mm 以上が 6 例あったが、そのうち 2 例のみが破裂動脈瘤で、残り 10 例は 10 mm 未満の未破裂動脈瘤であった。

carotid cave は distal dural ring の粗な硬膜の結合のために SAH を生じる可能性はあるが²⁾、周囲構造物のため、総じて小さな carotid cave の動脈瘤は破裂しにくいと考えられている。さらに近年の精度の高い MRA で、小さな carotid cave 動脈瘤はますます発見される率が高くなると考えられるため、小さな未破裂動脈瘤に対する治療の適応は今後、慎重でなければならない。しかし動脈瘤が大きくなると治療困難な部位でもあるため、MRA または 3D-CT など経過観察をして増大傾向が認められた場合には、小さくても治療を検討すべきと思われる。

本例の場合、他に明らかな動脈瘤は認められず、carotid cave の動脈瘤が破裂部位と決めてかかってしまったが、小さな carotid cave の動脈瘤の場合には他にも疑わしい部位がないか常々疑ってかからなければならぬ。疑わしい部位がある場合には carotid cave の動脈瘤に対する血管内手術が成功裏に終わっても、術後早期に follow-up の血管撮影を行うべきであると思われた。

結 語

血管内手術施行時には明らかでなかった破裂動脈瘤が、その後増大し、再出血した多発性動脈瘤の 1 例を経験した直接動脈瘤を確認できない血管内手術の場合、真の破裂動脈瘤なのかの判断はきわめてむずかしいが、carotid cave の小さな動脈瘤の破裂率は低いため、疑わしい部分があれば治療成功後も早期の follow-up の血管撮影が重要であると思われた。

文 献

- 1) Gurian JH, Viñuela F, Guglielmi G, Gobin P, Duckwiler GR: Endovascular embolization of superior hypophyseal artery aneurysms. *Neurosurgery* **39**: 1150-1156, 1996.
- 2) Kobayashi S, Kyoshima K, Gibo H, Hegde SA, Takemae T, Sugita K: Carotid cave aneurysms of the internal carotid artery. *J Neurosurg* **70**: 216-221, 1989.
- 3) Nutik SL: Ventral paraclinoid carotid aneurysms. *J Neurosurg* **69**: 340-344, 1988.
- 4) Ricolfi F, Guerinell C, Blustajn J, Combes C, Brugieres P,

- Melon E, Gaston A: Rupture during treatment of recently ruptured aneurysms with Guglielmi electrodetachable coils. *AJNR* 19: 1653-1658, 1998.
- 5) Roy D, Raymond J, Bouthillier A, Bojanowski MW, Mounjdjian R, L'Espérance G: Endovascular treatment of ophthalmic segment aneurysms with Guglielmi detachable coils. *AJNR* 18: 1207-1215, 1997.
- 6) Shanno GB, Armonda RA, Benitez RP, Rosenwasser RH: Assessment of acutely unsuccessful attempts at detachable coiling in intracranial aneurysms. *Neurosurgery* 48: 1066-1074, 2001.
- 7) Sluzewski M, Bosch JA, van Rooij WJ, Nijssen PCG, Wijnalda D: Rupture of intracranial aneurysms during treatment with Guglielmi detachable coils: Incidence, outcome, and risk factors. *J Neurosurg* 94: 238-240, 2001.
- 8) Solander S, Ulhoa A, Viñuela F, Duckwiler GR, Gobin YP, Martin NA, Frazee JG, Guglielmi G: Endovascular treatment of multiple intracranial aneurysms by using Guglielmi detachable coils. *J Neurosurg* 90: 857-864, 1999.
- 9) Thornton J, Aletich VA, Debrun GM, Alazzaz A, Misra M, Charbel F, Ausman JI: Endovascular treatment of paraclinoid aneurysms. *Surg Neurol* 54: 288-299, 2000.
- 10) Viñuela F, Duckwiler G, Mawad M: Guglielmi detachable coil embolization of acute intracranial aneurysm: Perioperative anatomical and clinical outcome in 403 patients. *J Neurosurg* 86: 475-482, 1997.

要 旨

初回破裂時には明らかでなかった破裂微小脳動脈瘤からの再出血に対する血管内手術

百次 仁 島袋 洋 嘉手苅 勤 國吉 毅 大兼 剛

初回破裂時には、径 5 mm の carotid cave の嚢状動脈瘤が明らかであったため、同部に対する血管内手術を施行し完全閉塞が得られたが、その際には明らかでなかった後交通動脈分岐部破裂動脈瘤がその後増大し再出血した、多発性動脈瘤の 1 例を経験した。直接動脈瘤を確認できない血管内手術の場合、真の破裂動脈瘤なのかの判断はきわめてむずかしい場合があるが、治療成功後も疑わしい部分があれば、早期の follow-up の血管撮影が重要であると思われる。特に carotid cave の小さい動脈瘤の破裂率は低いため、他に真の破裂動脈瘤がないか、十分な検索が必要と思われる。

脳外誌 13: 401-406, 2004

Editorial Comment

臨床上十分にあり得るケースではあるが、クモ膜下出血の症例において、実際は未破裂動脈瘤を治療してしまい、後に隠されていた破裂動脈瘤が姿を現し、再出血したという意味では、トリッキーで示唆に富む症例といえる。著者らも述べているが、クモ膜下出血の症例で、それほど大きくない carotid cave aneurysm しか認められなかった場合には、その流域に、ほかに破裂脳動脈瘤が隠されていないかどうか、十分に注意する必要があるということであろう。

本論文においてその点は賛同できるが、治療方法については少し議論しなければならない。初回の carotid cave aneurysm に対する血管内手術には異論はないが、第 2 回目の内頸動脈後交通動脈分岐部（以下 IC-PC）動脈瘤の血管内手術については、すぐには同意できない。著者らも文中に述べていることであり、それはあくまでも患者側の希望で、開頭術を拒否された結果の苦渋の選択ということである。患者側の希望というもので決まりということになるが、患者側の希望の根拠となる医療者側の説明はどうあるべきであろうか。本例の治療を考えてみると、少なくともある程度きちんとしたネックをもつ（コイル塞栓術が可能であったという事実がある）直径 2 mm の、しかも最終出血からほぼ 2 か月経過した、

再手術ではない IC-PC 動脈瘤の開頭直達クリッピング術のリスクがどの程度かは、経験を積んだ脳外科医には容易に想像がつくことであろう。一方血管内手術という、著者らも述べているごとく、本例の場合は術中破裂のリスクが通常よりもかなり高く、最悪の場合を想定した準備が必要であるとの認識である。数字で表すのはむずかしいとしても、本例のコイル塞栓術の合併症発生の予想リスクは、開頭直達クリッピング術の予想リスクの数倍に上るといわざるを得ないであろう。しかも本例は、すでに経過中に脳室腹腔短絡術という外科手術が施行されており、IC-PC 動脈瘤に対する血管内手術の選択の根拠は、患者側の希望以外にはなかったと思われる。

私自身は脳動脈瘤の治療において、患者の利益を考慮した場合に、むしろ血管内治療を推進したい立場ではあるが、現状では外科手術と血管内手術で得手不得手があり、その点を十分に考慮した適応の選択が重要であろう。本例はその点も考慮されたうえでの患者側の希望ということと考えたいが、読者もその点を理解して本論文を読んでいただければと思う。

琉球大学医学部脳神経外科 兵頭明夫