症例報告

出血性解離性椎骨動脈瘤に対して
ステントのみ留置した 1 例吉田賢作¹⁾ 大石英則²⁾ 山本宗孝³⁾ 寺西功輔³⁾ 原田佳尚¹⁾

A case of hemorrhagic vertebral artery dissecting aneurysm treated with sole stenting technique

Kensaku YOSHIDA¹⁾ Hidenori OISHI²⁾ Munetaka YAMAMOTO³⁾ Kosuke TERANISHI³⁾ Yoshinao HARADA¹⁾¹⁾Department of Neurosurgery, Tokyo Metropolitan Hiroo Hospital²⁾Department of Neuroendovascular Therapy, Juntendo University School of Medicine³⁾Department of Neurosurgery, Juntendo University School of Medicine

● Abstract ●

Objective: We report a case of hemorrhagic vertebral artery dissecting aneurysm (VADA) treated with sole stenting technique.**Case presentation:** A 39-year-old man developed severe headache and alteration of consciousness due to thick subarachnoid hemorrhage. Computed tomographic angiography (CTA) demonstrated right hemorrhagic VADA. Poor collateral flow under balloon occlusion in the right vertebral artery (VA) was also detected. We used the sole stenting technique for right hemorrhagic VADA both to prevent aneurysmal rebleeding and to avoid parent artery occlusion. Flow stagnation was achieved within the aneurysmal sac by using two balloon expandable coronary stents (stent-in-stent). No ischemic or hemorrhagic complications were observed. The patient was transferred to rehabilitation hospital. Angiography after 10 months showed complete obliteration of aneurysm and no recurrence was achieved for 3 years.**Conclusion:** The sole stenting technique could effectively treat hemorrhagic VADA.

● Key words ●

dissecting aneurysm, sole stenting, subarachnoid hemorrhage, vertebral artery

1) 東京都立広尾病院 脳神経外科

2) 順天堂大学医学部 脳神経外科学 脳血管内治療講座

3) 順天堂大学医学部 脳神経外科学

<連絡先> 吉田賢作 〒150-0013 東京都渋谷区恵比寿 2-34-10 E-mail: kyoshida@juntendo.ac.jp >

(Received November 20, 2014 : Accepted March 19, 2015)

doi: 10.5797/jnet.cr.2014-0036

緒 言

出血性解離性椎骨動脈瘤(hemorrhagic vertebral artery dissecting aneurysm: hVADA)は、再出血率が高い点から再出血予防のための外科的治療や血管内治療が考慮される¹⁾。血管内治療では、虚血耐性がある場合には血管解離部の internal trapping が選択されるが、虚血耐性がないために親動脈を温存する必要がある場合には、ステントが非常に有効なデバイスとなりうる。今回、われわれは hVADA に対してステン

ト単独での治療を行い3年間にわたり経過観察を行っている1例について文献的考察を交えて報告する。

症例呈示

患者：39歳，男性

主訴：意識障害

既往歴：高血圧(未治療)，肥満

現病歴：仕事中に突然の後頭部痛を発症後，昏睡状態で当院へ救急搬送された。頭部CTでは，脳底槽を中心としたくも膜下出血所見を認め(Fig. 1A)，頭部

Fig. 1

A: Axial unenhanced CT shows diffuse thick subarachnoid hemorrhage.

B: CTA shows a left hypoplastic vertebral artery.

CT angiography では、右椎骨動脈の動脈瘤様の拡張所見を認めた。しかし、左椎骨動脈の描出は認めなかった(Fig. 1B)。血管造影所見では、右椎骨動脈(V4 segment)に解離を認め(Fig. 2A)、出血原因は右椎骨動脈解離と診断した。左椎骨動脈は低形成で頭蓋内での描出は認めず、両側後交通動脈の発達も乏しい状況であった。また、右椎骨動脈の試験閉塞を行ったが、parenchymographyを施行しても脳底動脈の描出は認めないため、右椎骨動脈の親動脈閉塞不可と判断した。再出血予防処置の方針として、解離部の偽腔には奥行きがないためコイル留置は行わず解離部に冠動脈用ステント留置のみを行う方針とした。

本治療を行うにあたり、過去の文献における解離性椎骨動脈瘤に対する治療報告例があること、また、使用するステントについては本邦では頭蓋内血管留置専用のステントが未承認であるため、冠動脈用ステントを使用することをご家族に説明し同意を得た。また、本治療を行うにあたり、後日に院内倫理委員会での承認を得ている。

結 果

全身麻酔下に、7Fr Medikit VT(C)(メディキット, Japan)を右椎骨動脈 V2 segment に留置した。全

身へパリン化を行った後に、Excelsior SL10(Styker, Kalamazoo, MI, USA)で解離腔を慎重に越えて右後大脳動脈に留置した。

X-celerator10(Medtronic, Minneapolis, MN, USA)を挿入し、microcatheterを抜去した。解離部の計測において、血管径はproximal 3.56 mm-distal 2.81 mmで、解離部の長さは10 mmであった。ステントサイズの見積りは、拡張圧を上げることでの血管へストレスを配慮するようにした。Driver stent 3.5 mm×18 mm(Medtronic, Minneapolis, MN, USA)を、解離腔を覆うような位置で低圧(6気圧)でゆっくりと拡張し留置した。しかし、動脈瘤の消失を得ることができなかったため、Driver stent 3.0 mm×10 mmを、解離部を中心にステント内に収まるように低圧(6気圧)でゆっくりと拡張し留置を行った(Fig. 2B)。ステント内腔は保たれており、ステント外側部の動脈瘤内の造影剤停滞を認めたため、この時点で治療を終了した(Fig. 2C, D)。

治療後の経過

治療後は、気管内挿管下での人工呼吸管理を行いプロポホールでの鎮静を継続して血圧上昇の回避を行った。治療翌日と治療後7日目(Fig. 2E)に血管

Fig. 2

A: Initial diagnostic angiogram of the right vertebral artery shows a dissecting aneurysm with irregular wall.

B: Native image during deployment of stent-in-stent.

C: Right vertebral angiogram after stent deployment (arterial phase).

D: The right vertebral angiogram after stent deployment (venous phase) shows contrast medium was stagnated in the aneurysmal sac (arrowhead).

E: 7 days after stenting. Residual aneurysmal sac was well recognized. Basilar artery was narrowing due to cerebral vasospasm.

F: 1 month after stenting. Aneurysmal sac remained.

G: 10 months after stenting. No aneurysmal sac was shown on right vertebral angiogram. Parent artery was preserved.

造影検査を行ったが、動脈瘤内に造影剤は停滞するものの動脈瘤の消失は認めなかった。この時点で再出血がないことを確認した上でプロポホルによる鎮静を終了した。ヘパリンは術中より投与開始し、ACTが2.5倍から3倍になるように調整して術後24時間で投与終了とした。抗血小板薬はシロスタゾール100 mgを術中より投与し、術後は200 mg/日の投与を行ったが、虚血合併症を認めずに経過した。術後1カ月目の血管造影所見では、動脈瘤の残存を認めた(Fig. 2F)。臨床症状の経過は良好であり意識レベルの改善を認め、脳神経麻痺、運動感覚障害、小脳失調による協調運動障害は認めず、modified Rankin scale Grade 2で第50病日にリハビリテーション病院へ転院となった。術後10カ月目の血管造影検査所見で動脈瘤の消失を確認した(Fig. 2G)。術後3年間経過しているが、動脈瘤からの再出血や動脈瘤の再発は認めていない。

考 察

出血性椎骨動脈解離性脳動脈瘤に対する治療方針に関して、脳卒中ガイドライン2009では、再出血予防処置を行うためにはトラッピング術や血管内手術が推奨されている¹⁾。血管解離症例の再出血発生頻度は、14～69%と高いため¹⁾、再出血予防処置に関しては望まれる病態である。血管内治療を選択した場合、internal trappingの選択が一般的であるが¹⁾、ステント単独治療の報告も散見される。

椎骨解離性脳動脈瘤に対するステント単独治療に関する報告について、Parkらは27例(29動脈瘤)に対してステント単独治療を行い、治療に関連した合併症はなく、過去に報告された治療におけるreviewでは、後頭葉の脳梗塞のみ(4.7%)で、ステント単独治療の安全性を述べている²⁾。また、Isakaらは非出血性解離性椎骨動脈瘤に対するステント単独治療を施行した2症例を10年にわたる長期成績は良好であったと報告している³⁾。諸家の報告より、虚血発

症例でのステント単独治療の有用性は高いと思われる。特に、flow diverting stentを使用した非出血性解離性椎骨動脈瘤の長期成績について、Yeung らは合併症もなく良好な結果あったと報告している⁴⁾。

しかし、Zenteno らの報告において、出血発症椎骨解離性動脈瘤 20 例のステント単独治療例の内 1 例 (5%) は治療後 2 週間後に再出血し死亡しており、1 カ月後の経過で動脈瘤再発を呈している 1 例認めたことから注意深い経過観察が必要であると述べている⁵⁾。

解離部にステント留置を行う効果については、動脈瘤内への in-flow が変化し、瘤内の血流は停滞することで血栓化が誘発され閉塞に至ると考えられている⁶⁾。その要因として、ステントを重ねることでステントストラットがより細くなること、ステント留置による母血管の直線化で in-flow が変化することが上げられる^{5,7)}。

本症例の場合には、ステント留置後は動脈瘤内への flow は低下し造影剤の停滞する所見を認めたことから瘤内血栓化が期待できた。しかし、動脈瘤の閉塞までは 10 カ月の時間を要した。その要因の一つとしては、抗血小板薬の使用が考えられる。抗血小板薬の効果により瘤内血栓化が遅れるとの報告がある⁸⁾。しかし、ステント内血栓症は、ステント留置に伴う重大な合併症の一つである。そのため、術前から抗血小板薬 2 剤投与が推奨される。Park らの review でも、過去に 3 例のステント内血栓症例があり、抗血小板薬が投与されていない、もしくは服用できていない症例であったと報告している²⁾。ステント留置により穿通枝の patency は保たれると rabbit in vivo で報告があるが⁹⁾、椎骨動脈から直接分岐する穿通枝領域の脳梗塞を回避するためには抗血小板薬は必要である。剖検例より椎骨動脈から直接分岐する穿通枝は、椎骨動脈合流部から約 14 mm 以内に多いと述べられており¹⁰⁾、本症例においては、穿通枝分岐する部位とステント留置部との距離があったことや、治療中より単剤ではあるが抗血小板薬を使用したことから、穿通枝脳梗塞合併なく経過した。本来であれば、頭蓋内ステント留置を行う場合には抗血小板剤 2 剤併用が望まれるが、本症例においては、24 時間経過した時点でも動脈瘤の描出を認めたことから再出血が懸念されたためにシロスタゾールのみの投与を行った。そのため、ステント内血栓な

どの併発を回避するために、補液を中心とした周術期管理や血管造影検査や CT 画像でのモニタリングを頻繁に行った。しかし、狭窄病変の存在する症例や vertebral union より近い部位の解離病変は、ステント留置による穿通枝梗塞の合併に留意する必要がある⁵⁾。

本症例では、出血性椎骨動脈解離であるため、ステント内血栓症や穿通枝梗塞の合併症回避のための抗血小板薬はシロスタゾール 200 mg/日の投与を行った。シロスタゾールの投薬を 1 年間継続したが、ステント内血栓による脳梗塞や動脈瘤の増大や再出血の合併なく経過した。出血性解離性動脈瘤症例に対するステント単独治療の場合には、抗血小板薬の選択は慎重にあるべきとの報告があるが¹¹⁾、本症例においては、出血合併症を増大させないシロスタゾールを選択したこと¹²⁾、治療後に鎮静し血圧管理を行ったこと¹³⁾がステント内血栓症予防や動脈瘤からの再出血の回避に寄与したと推察する。しかし、過去の文献においても hVADA に対してステント併用コイル塞栓術後に再出血した症例は Kaku らの報告¹⁴⁾、Park らのステント単独治療での再出血の報告²⁾があることから、注意深い経過観察が必要である。

本症例に対するステント単独治療において、動脈瘤からの再出血を回避するために、①血圧管理するため鎮静を継続したこと、②出血合併症の低い抗血小板薬の選択したこと、③解離部に対して冠動脈用ステントを重ねて使用したこと、④ステント留置による母血管の直線化が有効であった。その有用性を示唆する報告はあるが⁶⁾、ステント内血栓や遅発性破裂の報告⁵⁾があることから、長期的な成績が待たれる。Chuanhui らは、ステント単独治療において脳底動脈を含む椎骨動脈解離性病変の治療成績について、動脈瘤の描出が残存する症例があると報告しており、症例ごとの対応が望まれる¹⁵⁾。また、flow diverting stent 使用での hVADA の治療成績は少ないが、Narata らは 2 例の hVADA に対して Pipeline stent を使用し合併症なく経過した症例を報告があり¹⁶⁾、今後の治療成績が期待される。本症例のように、hVADA において親動脈温存できる利点があるステント単独治療が有用である症例が存在することから、症例に応じた risk と benefit の熟慮した上での対応が望まれる。

結 論

hVADA に対するステント単独治療は、有効な治療と成り得るが、急性期においては再出血や虚血合併症の留意を要する。

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) 小野純一, 平井伸治, 芹澤 徹, 他. 脳卒中ガイドライン. 椎骨脳底動脈系解離性動脈病変の転帰決定因子 再出血に影響を及ぼす因子の検討. 脳神経外科ジャーナル 2002; 11: 265–270.
- 2) Park SI, Kim BM, Kim DI, et al. Clinical and angiographic follow-up of stent-only therapy for acute intracranial vertebrobasilar dissecting aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol* 2009; 30: 1351–1356.
- 3) 井坂文章, 樋口一志. ステント単独で治療した非出血性椎骨動脈解離性動脈瘤の2例 – ステント単独治療の長期成績 –. *JNET* 2013; 7: 111–118.
- 4) Yeung TW, Lai V, Lau HY, et al. Long-term outcome of endovascular reconstruction with the Pipeline embolization device in the management of unruptured dissecting aneurysms of the intracranial vertebral artery. *J Neurosurg* 2012; 116: 882–887.
- 5) Zenteno MA, Santos-Franco JA, Freitas-Modenese JM, et al. Use of the sole stenting technique for the management of aneurysms in the posterior circulation in a prospective series of 20 patients. *J Neurosurg* 2008; 108: 1104–1118.
- 6) Lieber BB, Stancampiano AP, Wakhloo AK. Alteration of hemodynamics in aneurysm models by stenting: influence of stent porosity. *Ann Biomed Eng* 1997; 25: 460–469.
- 7) Meng H, Wang Z, Kim M, et al. Saccular aneurysms on straight and curved vessels are subject to different hemodynamics: implications of intravascular stenting. *AJNR Am J Neuroradiol* 2006; 27: 1861–1865.
- 8) Fiorella D, Derdeyn CP, Lynn MJ, et al. Detailed analysis of periprocedural strokes in patients undergoing intracranial stenting in Stenting and Aggressive Medical Management for Preventing Recurrent Stroke in Intracranial Stenosis (SAMMPRIS). *Stroke* 2012; 43: 2682–2688.
- 9) Masuo O, Terada T, Walker G, et al. Study of the patency of small arterial branches after stent placement with an experimental in vivo model. *Am J Neuroradiol* 2003; 23: 706–710.
- 10) Mahmood A, Dujovny M, Torche M, et al. Microvascular anatomy of foramen caecum medullae oblongatae. *J Neurosurg* 1991; 75: 299–304.
- 11) Ansari SA, Thompson BG, Gemmete JJ, et al. Endovascular treatment of distal cervical and intracranial dissections with the neuroform stent. *Neurosurgery* 2008; 62: 636–646; discussion 636–646.
- 12) Gotoh F, Tohgi H, Hirai S, et al. Cilostazol stroke prevention study: a placebo-controlled double-blind trial for secondary prevention of cerebral infarction. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 2000; 9: 147–157.
- 13) Mayberg MR, Batjer HH, Dacey R, et al. Guidelines for the management of aneurysmal subarachnoid hemorrhage. A statement for healthcare professionals from a special writing group of the Stroke Council, American Heart Association. *Stroke* 1994; 25: 2315–2328.
- 14) Kaku Y, Yoshimura S, Yamakawa H, et al. Failure of stent-assisted endovascular treatment for ruptured dissecting aneurysms of the basilar artery. *Neuroradiology* 2003; 45: 22–26.
- 15) Chuanhui L, Youxiang L, Chuhan J, et al. Stent alone treatment for dissections and dissecting aneurysms involving the basilar artery. *J Neurointerv Surg* 2015; 7: 50–55.
- 16) Narata AP, Yilmaz H, Schaller K, et al. Flow-diverting stent for ruptured intracranial dissecting aneurysm of vertebral artery. *Neurosurgery* 2012; 70: 982–988; discussion 988–989.

JNET 9:103–107, 2015

要 旨

【目的】出血性解離性椎骨動脈瘤 (hemorrhagic vertebral artery dissecting aneurysm; hVADA) に対して、冠動脈用ステントを留置し再出血を回避し得た1例を経験した。本症例につき文献的考察を交え報告する。【症例】39歳男性、頭痛後の意識障害で発症、くも膜下出血を認めた。頭部 CT angiography で頭蓋内右椎骨動脈の動脈瘤様の拡張を認め、血管造影所見では右椎骨動脈解離の所見を認めた。側副血行路が乏しく右椎骨動脈温存が必要な状況であった。そこで、冠動脈用ステントを用いて解離部を覆うように留置を行った。その後は再出血なく経過し、mRS2 でリハビリテーション病院へ転院となった。治療10カ月後の血管造影検査において解離性動脈瘤の消失を認め、3年間の経過を行っているが血管造影検査において動脈瘤の再発は認めていない。【考察】本症例では、解離部にステント留置を行うことで血管内腔や分岐血管の温存をしつつ解離部に造影剤の pooling を認めたこと、発症より10カ月経過した時点で動脈瘤消失を認めたことから動脈瘤の再出血予防としては一定の効果が得られたと推察した。【結論】われわれは hVADA に対し、ステント単独治療が有用であった一自験例の報告を行った。