症 例

High flow バイパス 20 年後のグラフト血管に発生した破裂部分血栓化巨大動脈瘤の治療例

金 相年, 大瀧 雅文, 津田 宏重, 木村 友亮, 黒井 康博

A Case of a Ruptured, Giant Partially-thrombosed Intracranial Aneurysm Occurring in the Graft after Extracranial-intracranial Bypass Performed 20 Years Earlier

Sangnyon KIM, M.D., Masafumi OHTAKI, M.D., Hiroshige TSUDA, M.D., Yusuke KIMURA, M.D., and Yasuhiro KUROI, M.D.

Department of Neurosurgery, Obihiro Kosei General Hospital, Obihiro, Hokkaido, Japan

Summary: Cerebral revascularization with high-flow extracranial-intracranial (EC-IC) bypass is generally indicated in patients with complex intracranial aneurysms. This is the first reported case of aneurysm formation followed by rupture occurring on the graft itself, which was constructed to treat a patient with a giant internal carotid artery (ICA) aneurysm. A 78-year-old woman who had undergone right EC-IC bypass using a saphenous vein graft and ligation of the right cervical ICA to treat an unruptured right ICA giant aneurysm 20 years earlier presented with a subarachnoid hemorrhage (SAH). Computed tomography (CT) on admission revealed a ring-like mass in the right temporal lobe with an SAH. Angiography showed a fusiform aneurysmal formation on the graft just before the anastomotic site. We initially performed detachable coil embolization of the aneurysm with a stent in the acute stage. Next, endovascular trapping of the parent artery (saphenous vein graft) and removal of intra-aneurysmal thrombus were performed, after we created a new high-flow EC-IC bypass using a radial artery. We report this case along with a review of the literature.

Key words:

- EC-IC bypass
- de novo aneurysm
- graft
- combined therapy

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 44: 218-223, 2016

はじめに

巨大脳動脈瘤のような標準的な治療法による対応が困難な脳動脈瘤の治療において、対象血管の閉塞試験などの結果を踏まえたうえで、虚血性合併症の回避を目的に、橈骨動脈(radial artery: RA)や大伏在静脈(saphenous vein graft: SVG)といったグラフトや、浅側頭動脈(superficial temporal artery: STA)などを使用した各種バイパス術を設置することがある。こういった治療困難な脳動脈瘤の治

療の際に、母動脈閉塞を施行、もしくはバイパスを設置したために起き得る血流改変によって、バイパス血管の設置部位や、これとは無関係な部位に脳動脈瘤が生じ得ることが報告されている。一方で、バイパスを用いた治療後に、グラフト血管自体に動脈瘤が生じたという報告は少ない。20年前に施行された頭蓋外(extracranial: EC)-頭蓋内(intracranial: IC)バイパス術に用いたグラフト血管上に動脈瘤が発生し、破裂にいたった症例に対して、急性期および慢性期にわたり、血管内治療と外科治療を併用する

Fig. 1 Computed tomography image on admission showing a ring-like mass with intracerebral hemorrhage and subarachnoid hemorrhage in the right temporal lobe.

ことで根治し得た症例を経験した。当院で施行した治療戦略を経時的に提示し、考察を加え報告する。

症 例

患者：78歳，女性。

既往歴：20年前に，他院で右内頸動脈瘤に対しての根治術を施行されていた。SVGを用いた high flow バイパスの設置(右頸部外頸動脈-SVG-右中大脳動脈)および頸部内頸動脈の結紮を施行され，以降近医で経過観察となっていた。2年前に急性心筋梗塞を発症し，冠動脈ステントが留置されていた。

家族歴：くも膜下出血の家族歴なし。

現病歴：意識障害，頭痛および嘔吐で発症し，外来通院中であった他院へ救急搬送となり，くも膜下出血および脳内出血の診断の後に，加療目的に当院転送となった。

神経学的所見：Glasgow Coma Scale (GCS) 11，左上下肢ともに Manual Muscle Testing (MMT) 2/5 程度の不全片麻痺を認めた。

画像所見：頭部単純 CT で，右側頭葉内に埋没し，周囲脳浮腫を伴うリング状の高吸収および内部は低吸収域の占拠性病変を認め，中心構造偏位を伴っていた(**Fig. 1**)。前医での治療痕と思われる右前床突起削除およびその近傍のクリップが観察された。発症3週間前に施行された前医での MRI-T1 強調画像では，類円形の高信号を呈し，右側頭葉内の占拠性病変を認めた(**Fig. 2**)。脳血管撮影で，右内頸動脈は頸部から描出されず，右中大脳動脈(middle cerebral artery：MCA)が右外頸動脈から拡張した SVG と思われるグラフト血管を介して描出され，このグラフト

血管の右 MCA への吻合部直前に 18 mm×12 mm の紡錘状の膨隆を認めた(**Fig. 3A, B**)。左内頸動脈撮影では，前交通動脈を介して右 MCA の一部が造影された。連続的に行ったバルーン閉塞試験で，右総頸動脈の遮断下での左内頸動脈撮影では，右頭頂部分水嶺領域の血管描出が不良であった(**Fig. 3C**)。

診断：EC-IC バイパス手術に用いたグラフト血管に新生した部分血栓化巨大動脈瘤の破裂で，血栓化した部分の最大径が 38 mm であった。

急性期治療：一期的な根治術は困難と考え，再出血防止を図るために血管内治療を day 0 に施行した。広頸の脳動脈瘤であり，また，閉塞試験の結果から，頭蓋内ステントの使用によるグラフト血管の温存を図ることを計画した。既往の心筋梗塞のためにアスピリン 100 mg を服用していたが，複数の抗血小板薬の負荷量投与(クロピドグレル 300 mg，シロスタゾール 100 mg)をしたうえで，ステントでコイルのグラフト血管内腔への逸脱を防ぎながら，造影される部分のコイル塞栓術を施行した(**Fig. 4**)。画像上の出血性・虚血性合併症は発生しなかった。動脈瘤周囲の脳浮腫に対しては抗脳浮腫薬を使用し，全身管理を行った。day 14 に施行した脳血管撮影では，コイル塊の形状変化はほぼなかったが，再開通が認められた。

慢性期治療：脳浮腫は改善せず，意識障害も遷延していた。根治術として，① RA グラフトを用いた新たな外頸動脈-RA グラフト-MCA へのバイパスの設置，②脳動脈瘤および母動脈(SVG)のコイル塞栓，③瘤内血栓の摘出による mass effect の軽減，という一連の手術を day 45 に計画した。瘤内血栓の摘出時に術中破裂リスクがあり，顕微鏡

Fig. 2 T1-weighted magnetic resonance imaging 3 weeks before onset, demonstrating a high-intensity round mass.

A **B**
C

Fig. 3 **A:** Right common carotid angiogram showing fusiform aneurysmal formation (arrowhead) just before the anastomotic site of the extracranial dilated saphenous vein graft (SVG) and the posterior division of the right middle cerebral artery (MCA, arrow), and a clip proximal to the bifurcation of the right internal carotid artery (ICA). **B:** Three-dimensional digital subtraction angiogram of the right common carotid artery (CCA). **C:** Left internal carotid angiogram during test occlusion of the right CCA showing the delay of cerebral blood flow in the right parietal and temporal area (territory of posterior division of the right MCA).

Fig. 4 **A:** Contrast-enhanced cone-beam computed tomography shows the stent protecting the saphenous vein graft (SVG) and the posterior trunk of the right middle cerebral artery (MCA), and the two microcatheters secured within the aneurysm boundary. **B:** Right common carotid angiogram after the initial endovascular treatment showing obliteration of the aneurysm with coils and intracranial stent for aneurysmal neck bridging, which was deployed from the proximal trunk of the posterior division of the right MCA to the SVG beyond the aneurysmal neck.

下では出血時の対応が困難であることから母動脈閉塞が必要であり、閉塞試験の結果から、虚血合併症回避のため、新たな血行再建が必要であると考え、①→②→③の順に手技を連続的に施行した(**Fig. 5**)。なお、母動脈塞栓は、①のバイパス手術で露出されたSVGを直接穿刺して施行した。③の瘤内血栓の摘出後は外減圧状態として閉鎖し、脳浮腫が軽減した day 88 に頭蓋形成術を施行し、その後、続発した水頭症に対する脳室腹腔シャント術を day 100 に施行した。

治療後経過：day 113 で、modified Rankin Scale(mRS) 4 の状態で回復期施設へ転院され、現在は麻痺や言語障害などの後遺症状なく、mRS 2 の状態で当院外来通院中である。バイパスおよび母動脈閉塞の術後 12 カ月で施行した脳血管撮影では、グラフトは開存し、動脈瘤の再増大および新規脳動脈瘤の発生を認めなかった(**Fig. 6**)。

考 察

本症例に対してのわれわれの選択した手法について経時的に検討し、その問題点や妥当性について考察した。まず、破裂急性期の対応では、閉塞試験終了直後に、治療時期と方法につき検討した。急性期手術を回避し、慢性期に一期的に開頭下に根治術を行う選択肢も考えたが、脳浮腫が強く、さらに血管攣縮対策と再破裂予防を実施していく

Fig. 5 Schematic drawings of the final status after every endovascular and surgical intervention. The previous saphenous vein graft (SVG) was obliterated with coils and the posterior division of the right middle cerebral artery (MCA) was kept patent. The other anastomosis, a radial artery (RA) graft to the anterior division of the right MCA, was carried out. Thrombus in the aneurysm in the right temporal lobe was removed. ECA: extracranial carotid artery, M2: branch of the MCA

ことは、血圧管理の観点からも容易ではないと考え、急性期手術の実施を優先した。過去の治療歴から端を発する経過の長いグレードの悪い症例で、グラフト周囲の癒着など

Fig. 6 Bilateral carotid angiograms demonstrating no evidence of recurrent aneurysmal formation, and good patency of extracranial-intracranial bypass 12 months after the procedure.

も懸念され、脳浮腫を伴う巨大部分血栓化脳動脈瘤に対し、開頭クリッピングは難度が高く、抗血小板薬を負荷量で用いたうえでの頭蓋内ステントを用いたコイル塞栓術のほうが、合併症リスクは低いと考えた。

また、右頭頂葉の虚血合併症を覚悟の上での母動脈塞栓術や、急性期に RA グラフトを準備した根治術についても検討した。前者は、虚血巣の思わぬ拡大により、後遺症が甚大となる可能性があること、後者は、急性期の high flow バイパスの設置に際し、虚血合併症リスクやバイパス開存性などを考慮し、回避した。結果としては術中破裂および術後の再破裂もなく、経過中に脳梗塞の発生や、ステント内血栓形成などはみられなかった。脳血管攣縮はほぼみられず、当初われわれは抗脳浮腫薬による脳浮腫の軽

減が得られた後に根治術を行う計画を立てていたが、脳浮腫はまったく改善せず、day 45 に根治術を施行したが、より早期の根治術を図るべきであったかもしれない。

巨大脳動脈瘤の中でも、特に血栓化脳動脈瘤に関しての自然経過はきわめて不良で、2 年以内の mortality が 60% 以上とする報告もあり、予後不良の疾患とされる⁴⁾。欧米では、巨大脳動脈瘤に対して、血流改変ステントによる血管内治療が導入され、画期的な成果も報告されている⁶⁾。本邦でも血流改変ステントは臨床応用に向けた過程にあるが、現況では、罹患血管の閉塞試験の結果に応じて母動脈閉塞のみを施行、もしくはこれに何らかのバイパス術を加えるという治療戦略をとることが多い³⁾。この巨大脳動脈瘤の治療自体が、複雑なプロセスから構成され、治療の時

期や薬剤の使用，周術期管理も含めて標準的な治療法は確立されておらず，長期成績の報告は少ない。

バイパス血管の有無にかかわらず，母動脈閉塞のみの血流改変によっても，異なる部位の脳動脈瘤の破裂や新生脳動脈瘤の発生といった報告が散見される¹⁾。さらに，STA-MCA バイパス術後のもやもや病患者においても，吻合部の脳動脈瘤発生が報告されている⁷⁾。また，SVG を用いた冠動脈バイパス術において，SVG の瘤化が全症例の 56% とする報告もある⁸⁾。涉猟し得た限り，high flow バイパス術後でグラフト上(頭蓋外)に動脈瘤が発生したとする報告は 1 例のみであったが，本来の順行性血流に変化を加えるこれらの治療法の長期経過で，瘤形成自体はまれな事象ではないことは推察できる⁵⁾。

今後も，巨大脳動脈瘤の治療法は，血管内治療の進歩とともに適応や方法が変化していくことが予想される。しかし，血行動態に影響を与え得る治療は，われわれの想像し得なかった臨床経過をたどる可能性があり，巨大脳動脈瘤のような困難な疾患に対しての治療を完遂したことで得られる満足感に浸るだけでなく，中・長期的な経過を丁寧に観察し続けることが求められる。

結 語

右内頸動脈瘤に対する EC-IC high flow バイパス術後のグラフト血管に，20 年の経過の後に動脈瘤を形成し，破裂にいたった症例を経験した。初期治療・根治術ともに困

難な症例であったが，当院での治療戦略を詳細に報告した。巨大脳動脈瘤に対する治療後の長期経過観察の重要性を示唆する症例であった。

文 献

- 1) Anson JA, Stone JL, Crowell RM: Rupture of a giant carotid aneurysm after extracranial-to-intracranial bypass surgery. *Neurosurgery* 28: 142-147, 1991
- 2) Arambepola PK, McEvoy SD, Bulsara KR: De novo aneurysm formation after carotid artery occlusion for cerebral aneurysms. *Skull Base* 20: 405-408, 2010
- 3) Jafar JJ, Russell SM, Woo HH: Treatment of giant intracranial aneurysms with saphenous vein extracranial-to-intracranial bypass grafting: indications, operative technique, and results in 29 patients. *Neurosurgery* 51: 138-144, 2002
- 4) Locksley HB: Natural history of subarachnoid hemorrhage, intracranial aneurysms and arteriovenous malformation: based on 6368 cases in the cooperative study. *J Neurosurg* 25: 219-239, 1966
- 5) Marcus HJ, Patel HC, Kirkpatrick PJ: Graft aneurysm complicating an extracranial-intracranial bypass. *Br J Neurosurg* 23: 548-550, 2009
- 6) Nelson PK, Lylyk P, Szikora I, *et al*: The pipeline embolization device for the intracranial treatment of aneurysms trial. *AJNR Am J Neuroradiol* 32: 34-40, 2011
- 7) Nishimoto T, Yuki K, Sasaki T, *et al*: A ruptured middle cerebral artery aneurysm originating from the site of anastomosis 20 years after extracranial-intracranial bypass for moyamoya disease: case report. *Surg Neurol* 64: 261-265, 2005
- 8) Nishimura K, Nakamura Y, Harada S, *et al*: Saphenous vein graft aneurysm after coronary artery bypass grafting. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 15: 61-63, 2009