

血管内治療でトラッピングを行った特発性外頸動脈瘤の1例

小祝 萌¹⁾, 市川 剛¹⁾, 伊藤裕平¹⁾, 卯月 大¹⁾, 鈴木恭一¹⁾

1) 福島赤十字病院脳神経外科 〒960-8530 福島県福島市八島町 7-7

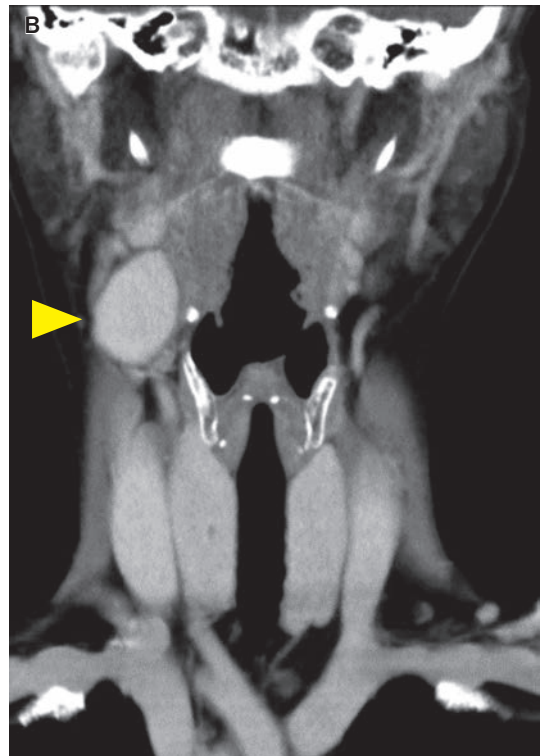
【緒言】 外頸動脈瘤の報告は比較的稀であり、その原因として、外傷性、細菌感染性、医原性などが報告されている。今回、我々は血管内治療でトラッピングを行った特発性外頸動脈瘤の症例を経験したので報告する。

【症例】 59歳、女性。10年前からの右頸部腫瘍精査のため、当院に紹介された。造影CT検査で血管との連続性を認め、外頸動脈瘤が疑われた。出血による気道閉塞の可能性があったため、治療適応と考慮し、血管内治療でトラッピングを施行し、動脈瘤の消失と頸部腫瘍の縮小を得た。

【結語】 血管内治療でのトラッピングを行った、特発性外頸動脈瘤の1例を報告した。未破裂の外頸動脈瘤に対しては、血管内治療は有効な治療手段であると考えられる。

Key Words

external carotid artery aneurysm, endovascular trapping, trans arterial coil embolization



(Received December 31, 2023; Accepted February 13, 2024)

I. 緒言

外頸動脈瘤の報告は比較的稀である。その原因の多くは、外傷性^{1, 2)}、細菌感染性³⁾、医原性^{4, 6)}、先天性⁷⁾、線維筋性異形成や神経線維腫症、Marfan 症候群などの疾患に合併するもの⁸⁻¹⁰⁾などが報告されているが、明らかな原因が特定できないものも存在する¹¹⁾。治療方法も、症例に応じて直達術^{10, 12)}や血管内治療^{1, 2, 5, 8)}が施行されているが、定まった治療方法はない。今回、我々は血管内治療でトラッピングを行った特発性外頸動脈瘤の1例を経験したので、文献的考察も含めて報告する。

II. 症例提示

患者：59歳，女性。

主訴：右頸部腫瘍。

既往歴：高血圧，左眼網膜動脈閉塞症。なお，外傷や手術歴，放射線治療歴なし。線維筋性異形成，神経線維腫症，Marfan 症候群の家族歴なし。

現病歴：約10年前から特に誘因なく，右頸部（顎下）腫瘍を自覚した。腫瘍は2年前から徐々に増大傾向となり，精査目的に当院に紹介された。腫瘍は造影CT検査で外頸動脈との連続性を認め，外頸動脈瘤が疑われた。

現症：身長152cm，体重52kg，血圧111/76mmHg。意識清明で，明らかな神経学的異常なし。皮膚や骨格に異常なし。右頸部に拍動性の腫瘍を認めた（Fig. 1）。

血液検査：WBC $4.4 \times 10^3/\mu\text{L}$ ，RBC $4.42 \times 10^6/\mu\text{L}$ ，Hb 13.9g/dL，Plt $260 \times 10^3/\mu\text{L}$ ，CRP 0.03mg/dL。腎機能や肝機能，凝固に異常なし。



Fig. 1 Right neck mass

画像所見：造影CTにて，右頸部に造影効果を伴う腫瘍性病変を認めた（Fig. 2）。病変は2カ所あり，上甲状腺動脈（superior thyroid artery：STA）分岐部直後の外頸動脈本幹に約30mm，後頭動脈（occipital artery：OA）分岐部に約10mmの腫瘍を認めた（Fig. 3）。腫瘍やリンパ節腫脹，膿瘍は認めなかった。

以上の検査結果より，外頸動脈瘤と診断した。動脈瘤は緩徐に増大傾向であり，出血時の気道閉塞の可能性もあったため，治療適応と判断した。動脈瘤は2カ所にあり，末梢の動脈瘤は高位で直達術では侵襲が大きいことが考えられたため，血管内治療でのトラッピングを選択した。

手術所見：局所麻酔，鎮静下に手術を施行した。右大腿動脈を穿刺し，6Fr FUBUKI Dilator Kit 90cm（朝日インテック）を右外頸動脈（external carotid artery：ECA）に誘導した。右ECAの血管造影で，OA分岐部に11mm×11mm，STA分岐部直後の本幹に31mm×21mmの動脈瘤を認めた（Fig. 4A）。右ECAのproximal occlusionのみでは，ECA末梢からのback flowにより不完全な塞栓となる可能性を考慮し，OA，

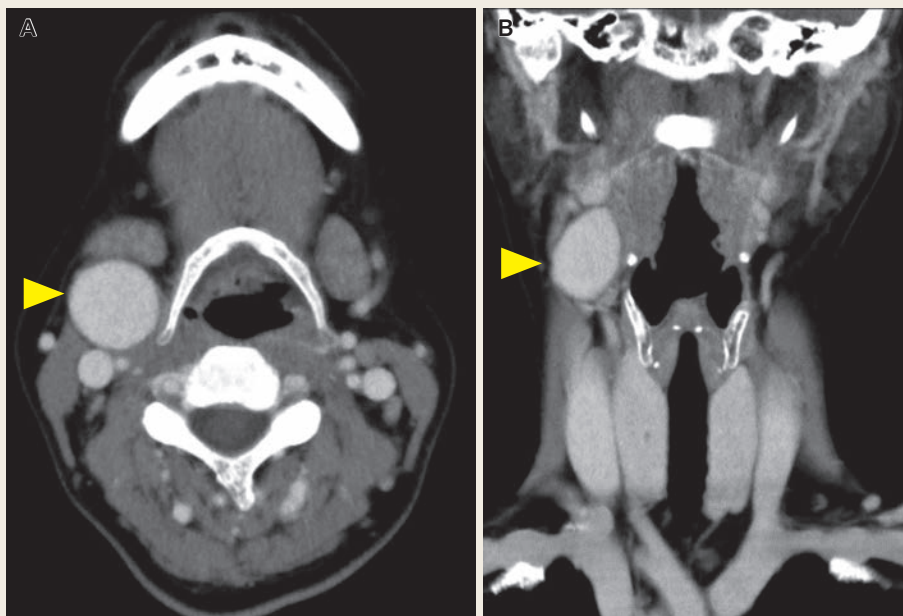


Fig. 2 Contrast-enhanced computed tomography (CT) (A : Axial section, B : Coronal section)

Contrast-enhanced lesion was diagnosed as an aneurysm (arrowhead) .

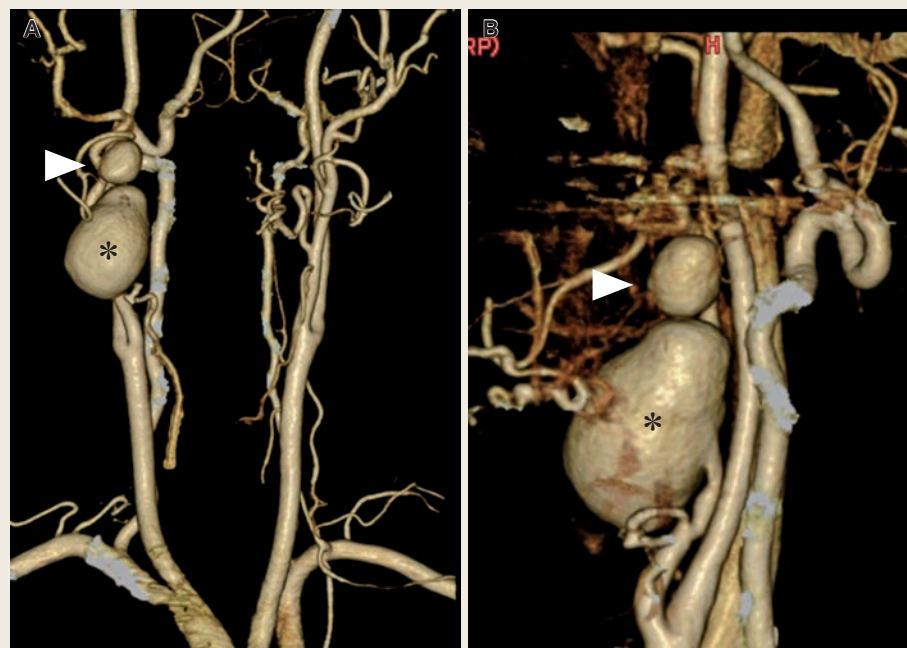


Fig. 3

3D-CT Angiogram (A : front view, B : left side view) revealed two external carotid artery aneurysms: An aneurysm was located in the main trunk of the external carotid artery immediately distal to the bifurcation of the superior thyroid artery (*) ; another small aneurysm was in the occipital artery bifurcation (arrow) .

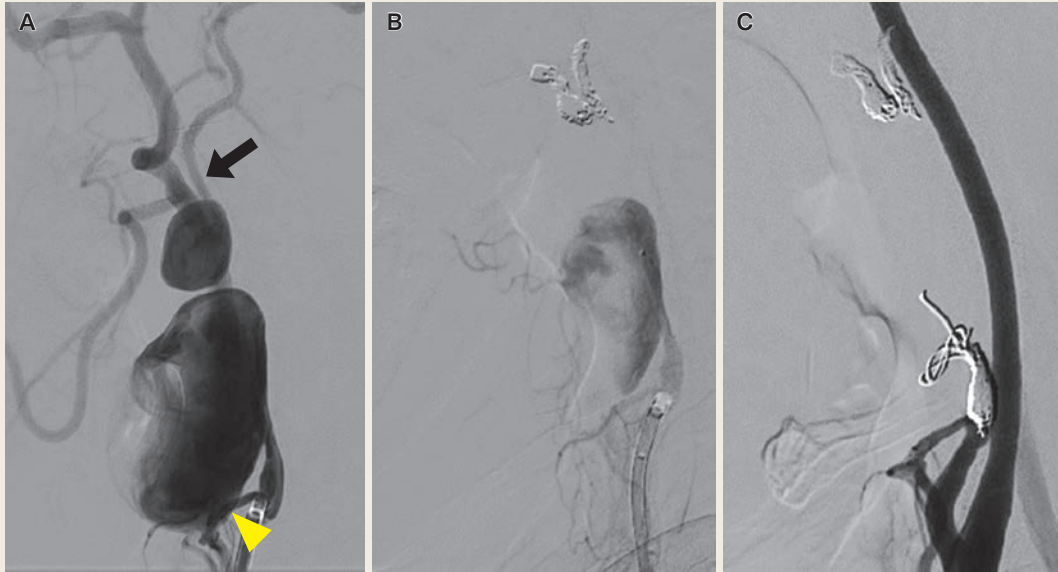


Fig. 4 Endovascular trapping

A: An aneurysm measuring 31 mm×21 mm is identified in the external carotid artery post-bifurcation of the superior thyroid artery (arrowhead) , and an additional 11 mm×11 mm aneurysm in the occipital artery bifurcation (arrow) .
B: Post- embolization of the distal side of the aneurysm.
C: Post- trapping.

ECA の末梢と、動脈瘤近位の ECA 本幹を閉塞してトラッピングを行う方針とした。Excelsior SL-10 (日本ストライカー) を CHIKAI 14 (朝日インテック) にて OA に誘導し、bare platinum coil 3 本、計 18 cm を用いて OA を塞栓した。次いで、SL-10 を動脈瘤以遠の ECA 末梢に誘導し、bare platinum coil 8 本、計 58 cm にて塞栓した。塞栓後に造影を行い、動脈瘤末梢側が閉塞していることを確認した (Fig. 4B)。その後、動脈瘤の proximal に SL-10 を引き戻し、瘤内の一部にコイルを出してアンカリングし、bare platinum coil 9 本、計 64 cm のコイルにて、STA を温存するかたちで母血管閉塞を行い、動脈瘤の消失を認めた (Fig. 4C)。術後の動脈瘤の縮小を期待して、瘤内塞栓は行わなかった。

術後経過：右頸部の腫脹は残存したが、術直後より腫瘍の拍動は消失した。神経脱落症状の出現

は認めなかった。術後 2 日目に右頸部痛と咽頭痛の出現を認めたが、鎮痛薬内服にて軽快した。術後 9 日目に自宅退院した。術後 3 カ月目の造影 CT では、動脈瘤は造影されず、径の縮小傾向を認めた (Fig. 5)。右頸部の腫脹も縮小した。術後約 3 年経過した現在も、再発は認めていない。

本症例の報告に関して、患者本人・家族の同意を取得している。

III. 考 察

外頸動脈瘤の報告は比較的稀である。正確な発生頻度は明らかではないが、頭蓋外に発生する頸動脈瘤は動脈瘤全体のなかで 1% 未満との報告があり⁹⁾、外頸動脈瘤のみに限ればさらに頻度は低いと考えられる。動脈瘤が形成される原因としては、外傷性と非外傷性の要因が指摘されており、

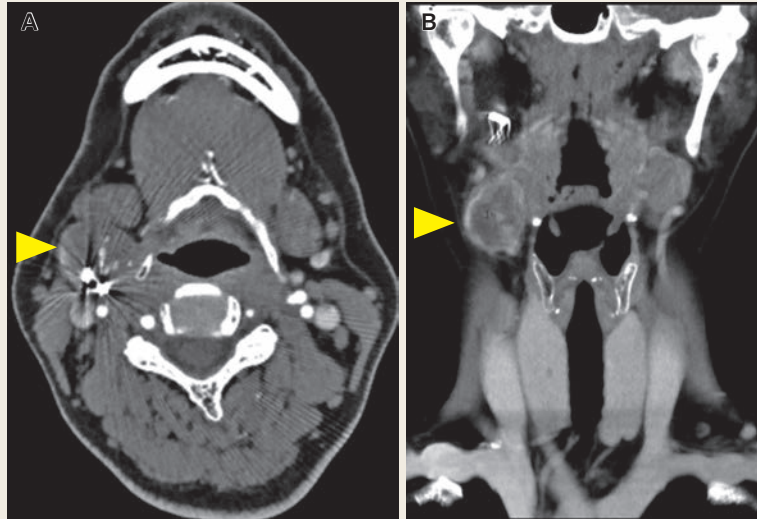


Fig. 5 Contrast-enhanced CT 3 months post-surgery (A : Axial section, B : Coronal section)

Imaging revealed reduction in aneurysm size and loss of contrast effect.

外傷性としては、下顎骨の骨折などの頸部の外傷に合併したもの¹⁾、頸部に直接損傷がなかった重症頭部外傷後に生じたもの²⁾のほか、カイロプラクティック施術の関与が疑われたもの¹²⁾などの報告があり、外頸動脈に欒断力や過伸展が加わって血管が損傷されて動脈瘤が形成される可能性が推察されている¹²⁾。一方、非外傷性としては、膿瘍などの細菌感染性³⁾、頸部手術後や放射線治療、抜歯による医原性⁴⁶⁾、先天性⁷⁾、線維筋性異形成や神経線維腫症、Marfan 症候群などの疾患に合併するもの⁸⁻¹⁰⁾など、多岐にわたるが、明らかかな原因が特定できない特発性も稀に存在する¹¹⁾。本症例においては、外傷の既往はなく非外傷性の動脈瘤が疑われた。血液検査や画像所見、問診などから、感染性や医原性、先天性疾患も原因としては考えられず、特発性の外頸動脈瘤と考えられた。

このように様々な原因で生じる外頸動脈瘤であるが、動脈瘤の発生場所も外頸動脈本幹^{5, 8)}だけでなく、顔面動脈^{1, 6)}、顎動脈²⁾、舌動脈¹³⁾な

どの分枝に発生した症例が報告されている。

外頸動脈瘤は、拍動性の無痛性または有痛性の皮下腫瘍として発見されることが多い。一般的に、小さな動脈瘤は無症状であることが多いが、増大すると、一過性脳虚血発作、視機能障害、舌咽神経麻痺による嚥下障害などの脳神経症状を呈することもある^{2, 9)}。最も注意すべき合併症として、動脈瘤破裂・出血が挙げられ、血腫形成による頸部の腫脹¹²⁾や、口腔内の出血^{1, 13)}などを呈し、気道緊急につながる可能性がある。実際、破裂による上気道圧迫によって、緊急気管切開と止血術を要した症例も報告されている¹⁰⁾。本症例は、無痛性頸部腫瘍のみの症例であったが、緩徐に増大傾向にあった点や破裂による気道閉塞のリスクを考慮して待機的に外科的治療を行った。

外頸動脈瘤の治療は、出血時の止血、破裂の予防や周囲組織への圧迫解除の目的で行われる。外科的治療法として、直達手術を行った症例^{10, 12)}、血管内治療を選択した症例^{1, 2, 5, 8)}のどちらの報

告も認められた。直達術においては、動脈瘤切除、人工血管や自家静脈を用いた血管形成術、外頸動脈結紮などが行われ、血管内治療においては、Detachable coil, n-butyl-2-cyanoacrylate, stentなどを用いた瘤内塞栓や母血管閉塞が行われている。頭蓋外の頸動脈瘤に対する、直達術と血管内治療を比較した文献では、直達術のほうが術後の脳神経麻痺の合併症が多く、入院期間が長かったとの報告がある¹⁴⁾。また、外頸動脈の仮性動脈瘤に対して血管内治療で母血管閉塞を行った17例においては、全例で根治が得られ、手術関連合併症はなかったと報告されている¹⁵⁾。このような高い根治率や合併症の少なさに加え、侵襲性の低さ、デバイスの発達、外頸動脈では内頸動脈と比較して脳虚血に留意する必要性が低い点などから、近年は血管内治療の報告が増加しているが、動脈瘤の形状、場所、大きさ、破裂や血腫形成の有無などの緊急度に応じて、症例ごとに治療法を選択する必要がある。特に、感染性外頸動脈瘤においては、抗生物質治療のみで動脈瘤が消失した報告³⁾もあり、外科的治療ではなく内科的治療が考慮される症例もある点には留意したい。

本症例では、2カ所に動脈瘤があり、末梢の動脈瘤が高位で直達術では侵襲が大きくなることを考慮し、血管内治療を選択した。血管内治療にお

いても、様々な治療方法が考えられるが、瘤内塞栓では、多数のcoilを必要とするため効率的ではなく、coil massによって術後の動脈瘤の縮小効果が低下する可能性がある。また、眼動脈が外頸動脈系に依存しているなどの破格がない限りは、外頸動脈本幹は閉塞可能であるため、本症例においてstentを使用して母血管を温存する意義は乏しく、周術期の抗血小板薬内服の必要性も生じるため、母血管閉塞よりも根治性に劣る可能性がある。これらの理由から、根治性と術後の動脈瘤縮小を期待して瘤内塞栓ではなくトラッピングを行い、実際に頸部腫瘍の縮小を得た。術後約3年経過した現在も動脈瘤の再発は認めておらず、本症例に対する血管内治療でのトラッピングは有効であった。

IV. 結 語

緩徐に増大する特発性外頸動脈瘤の1例を報告した。血管内治療でのトラッピングを行い、良好な転帰を得た。血腫形成のない、未破裂の外頸動脈瘤に対しては、血管内治療は有効な治療手段であると考えられる。

COI 本論文の発表に関して、開示すべきCOIはない。

文献

- 1) Blum C, et al: Facial artery pseudoaneurysm after repair of mandibular fracture. *J La State Med Soc* 164: 194-6, 2012
- 2) Ahn JY, et al: Traumatic dissection of the internal maxillary artery associated with isolated glossopharyngeal nerve palsy: case report. *Neurosurgery* 55: 710, 2004
- 3) 中村 雄 ほか: 扁桃周囲膿瘍に続発した感染性仮性外頸動脈瘤の1例. *日耳鼻* 117: 122-7, 2014
- 4) Laurito A, et al: Percutaneous Embolization of Delayed External Carotid Artery Pseudoaneurysm Eight Years after Partial Parathyroidectomy. *Ann Vasc Surg* 43: 311.e1-4, 2017
- 5) Li SH, et al: Pseudoaneurysm of the external carotid artery branch following radiotherapy for nasopharyngeal carcinoma. *Jpn J Clin Oncol* 37: 310-3, 2007
- 6) Dediol E, et al: Facial artery pseudoaneurysm without evidence of trauma. *Int J Oral Maxillofac Surg* 40: 988-90, 2011
- 7) Lee JM, Joo SP: A giant fusiform aneurysm of the external carotid artery branch in an infant. *Acta Neurochir (Wien)* 152: 1431-3, 2010
- 8) Fuse T, et al: External carotid artery aneurysm developing after embolization of a ruptured posterior inferior cerebellar artery aneurysm in a patient with cervicocephalic fibromuscular dysplasia--case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 46: 290-3, 2006
- 9) Fankhauser GT, et al: Surgical and medical management of extracranial carotid artery aneurysms. *J Vasc Surg* 61: 389-93, 2015
- 10) Souldi H, et al: Ruptured left external carotid artery aneurysm presenting as upper airway obstruction in von Recklinghausen's disease. *Int J Surg Case Rep* 26: 170-2, 2016
- 11) Balachandran S, et al: Idiopathic multiple aneurysm of external carotid artery. *J Family Med Prim Care* 3: 164-5, 2014
- 12) 岡田真幸 ほか: カイロブラクティック施術に関連した頸部外頸動脈仮性動脈瘤の1例. *No Shinkei Geka* 47: 799-804, 2019
- 13) Murono S, et al: Pseudoaneurysm of the lingual artery after concurrent intra-arterial chemotherapy with radiotherapy for advanced tongue cancer. *Head Neck* 33: 1230-2, 2011
- 14) Ni L, et al: Open surgery versus endovascular approach in treatment of extracranial carotid artery aneurysms. *J Vasc Surg* 67: 1429-37, 2018
- 15) Wang D, et al: Embolization treatment of pseudoaneurysms originating from the external carotid artery. *J Vasc Surg* 61: 920-6, 2015

Endovascular Trapping of an Idiopathic External Carotid Artery Aneurysm: A Case Report

Megumi KOIWAI¹⁾, Tsuyoshi ICHIKAWA¹⁾, Yuhei ITO¹⁾, Dai UZUKI¹⁾, Kyouichi SUZUKI¹⁾

¹⁾ Department of Neurosurgery, Japanese Red Cross Fukushima Hospital

External carotid artery aneurysms are relatively rare, with causes including trauma, infection, and iatrogenic factors. We report a case of a 56-year-old woman with a decade long history of pulsatile neck mass, diagnosed as an idiopathic external carotid artery aneurysm. Endovascular trapping was performed due to the surgical indication arising from the potential risk of airway obstruction in the event of aneurysm rupture. The procedure successfully eliminated the aneurysm and reduced the neck mass. This case underscores the efficacy of endovascular therapy in managing unruptured external carotid artery aneurysms.