

## 症例報告

## 内頸動脈低形成と異所性右鎖骨下動脈に合併した未破裂内頸動脈瘤に対してコイル塞栓術を施行した1例

山田 匠<sup>1</sup>, 大谷 敏幸<sup>1</sup>, 鹿児島海衛<sup>1</sup>, 和田裕千代<sup>1</sup>, 山口 玲<sup>2</sup>, 好本 裕平<sup>2</sup>

1 埼玉県深谷市上柴町西 5-8-1 日本赤十字社深谷赤十字病院脳神経外科

2 群馬県前橋市昭和町 3-39-15 群馬大学医学部附属病院脳神経外科

## 要旨

内頸動脈低形成と異所性右鎖骨下動脈に合併した未破裂内頸動脈瘤に対し、コイル塞栓術を施行した症例を経験したので報告する。症例は56歳女性。めまいの精査目的に他院で施行したmagnetic resonance (MR) imagingで左内頸動脈瘤を指摘されたため当院へ紹介となった。初診時、神経学的な異常は認めなかった。脳血管撮影とCT angiographyで右内頸動脈低形成と異所性右鎖骨下動脈を認めた。左内頸動脈瘤の大きさは7.5×5.8 mm, neckは3.6 mmであり、ブレブを伴っていた。破裂予防目的に左内頸動脈瘤に対してバルーン併用下コイル塞栓術を施行した。術中、左内頸動脈の血流遮断を数回要した。左内頸動脈瘤は完全に塞栓され、周術期に有害事象は認めなかった。内頸動脈低形成と異所性右鎖骨下動脈の合併は稀であり、これらの破格を有する症例では血管内手術を行う際、アクセスルートの制限や脳虚血耐性に注意が必要である。

## 文献情報

## キーワード:

未破裂脳動脈瘤,  
内頸動脈低形成,  
異所性右鎖骨下動脈

## 投稿履歴:

受付 平成31年1月29日  
修正 平成31年3月6日  
採択 平成31年3月7日

## 論文別刷請求先:

山田 匠  
〒366-0052 埼玉県深谷市上柴町西5-8-1  
日本赤十字社深谷赤十字病院脳神経外科  
電話: 048-571-1511  
E-mail: beautyz.are.felt.with.heart@gmail.com

## 緒言

内頸動脈低形成と異所性右鎖骨下動脈はそれぞれ0.01%以下,<sup>1</sup>0.16-4.4%<sup>2</sup>と稀な破格である。今回我々は右内頸動脈低形成と異所性右鎖骨下動脈に合併した未破裂左内頸動脈瘤に対し、バルーン併用下コイル塞栓術を施行した症例を経験したので文献的考察を加え報告する。

## 症例

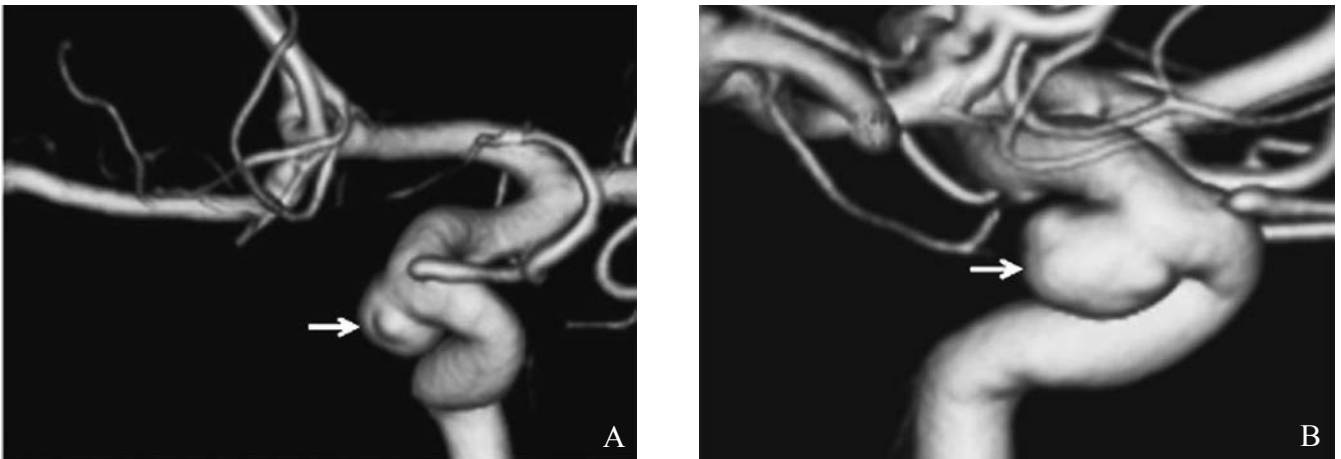
患者: 56歳, 女性

既往歴: うつ病

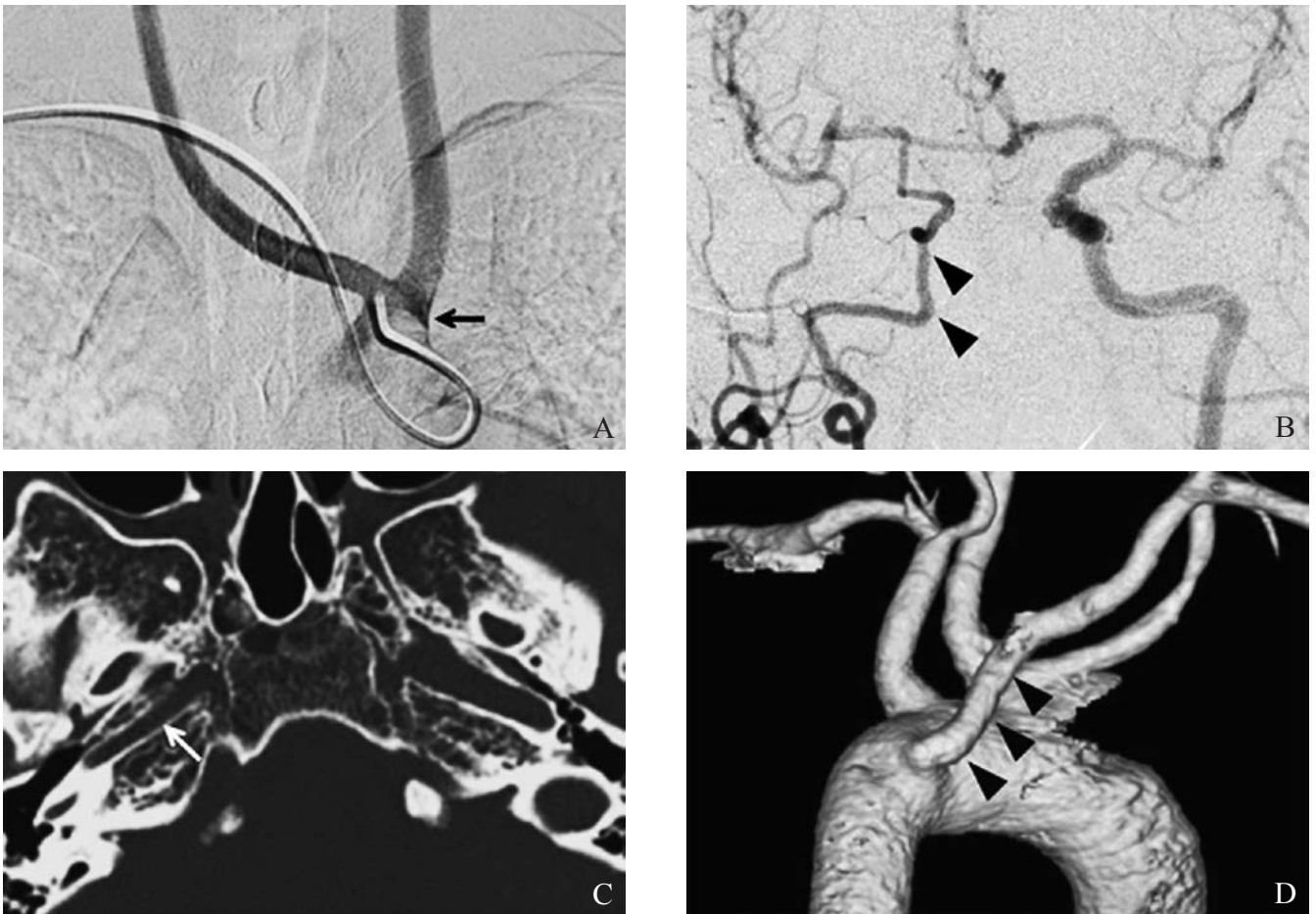
現病歴: めまいの精査目的にmagnetic resonance (MR) imagingを他院で施行した。左内頸動脈瘤を指摘されたため、治療目的に当院へ紹介となった。当院紹介時、神経学的異常は認めなかった。

画像所見: 脳血管撮影で左内頸動脈傍前床突起部瘤の大きさは7.5×5.8 mm, neckは3.6 mmであり、ブレブを伴っていた (Fig. 1A, 1B)。また左右総頸動脈の起始部は共通管を形成しており (Fig. 2A)、右内頸動脈は低形成であった (Fig. 2B)。骨条件のcomputed tomography (CT) で右頸動脈管は低形成であった (Fig. 2C)。またCT angiographyで異所性右鎖骨下動脈を認めた (Fig. 2D)。右内頸動脈領域は前交通動脈を介しての側副血行路により描出され、右後交通動脈を介した側副血行路は認めなかった。

治療方針: 未破裂左内頸動脈傍前床突起部瘤に対して治療



**Fig. 1** Three-dimension digital subtraction angiogram (3D-DSA). A, B: 3D-DSA shows an internal carotid artery (ICA) aneurysm with a bleb (arrows). The size of the aneurysm was  $7.5 \times 5.8$  mm, and its neck was 3.6 mm.

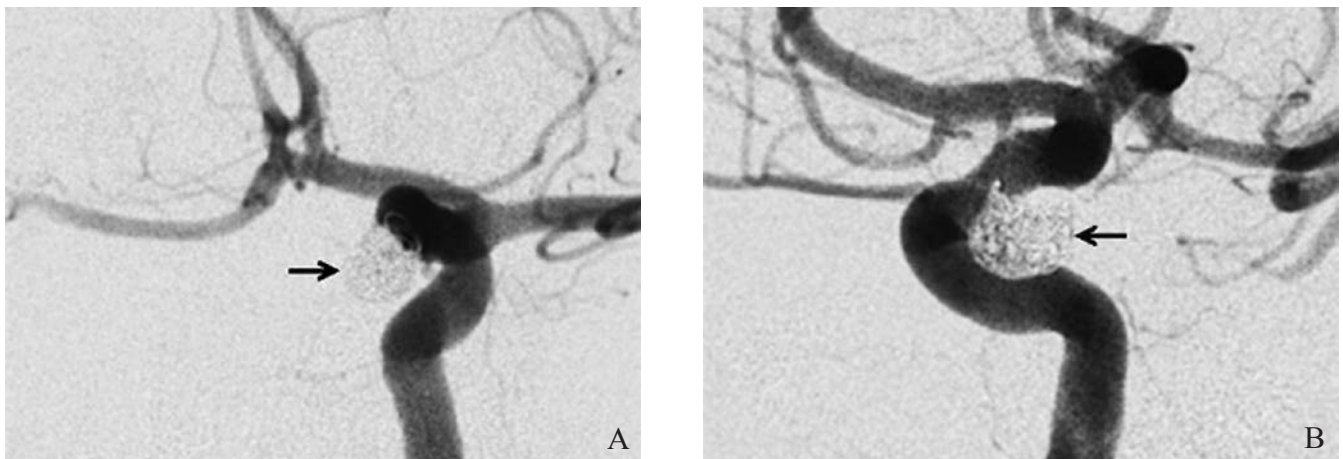


**Fig. 2** Carotid angiogram and computed tomography (CT) findings. A, B: Carotid angiogram shows the bicarotid trunk (arrow) and the right ICA hypoplasia (arrowheads). C: Axial bone window CT demonstrates hypoplasia of the right carotid canal (arrow). D: Posterior view of the CT angiography shows the aberrant right subclavian artery diverting from the descending aorta (arrowheads).

希望があり，脳動脈瘤コイル塞栓術を行う方針とした．治療1週間前よりアスピリン 100 mg/day，クロピドグレル 75 mg/day を開始した．

**脳血管内手術：**治療は全身麻酔下に，7Fr Roadmaster (Goodman, 愛知) を左内頸動脈に留置した．Sceptor XC 4 mm  $\times$  11 mm (Terumo, 東京) を脳動脈瘤の頸部近傍に誘導した．

Asahi CHIKAI 14 (朝日インテック, 愛知) を用いて Excelsior XT-17 (Stryker, Kalmanzoo, MI, USA) を脳動脈瘤内へ誘導した．バルーンアシストでコイルを挿入し，合計6本のコイルを脳動脈瘤内に充填した．Volume embolization ratio は24.6%であり，脳動脈瘤は完全に塞栓された (Fig. 3)．術後拡散強調画像で新規虚血病変は認めず，



**Fig. 3** Endovascular surgery. A, B: Left internal carotid angiogram after coil embolization shows the complete obliteration (arrows). (A: anteroposterior view, B:lateral view).

**Table 1** Summary of patients with cerebral aneurysm associated with internal carotid artery hypoplasia and agenesis treated with coil embolization.

Author (year)	Age/Sex	ICA	Aneurysm site	Presentation
Lee JH, et al (2003)	31/M	bilateral hypoplasia	BA	SAH
Barbosa LG, et al (2010)	34/F	bilateral agenesis	BA	SAH
Kang HJ, et al (2012)	59/F	left agenesis	azygous ACA	SAH
Present case	56/F	right hypoplasia	left ICA	incidental finding

ICA internal carotid artery, BA basilar artery, ACA anterior cerebral artery, SAH subarachnoid hemorrhage

modified Rankin Scale 0 で退院した。

## 考察

内頸動脈は胎生期に背側大動脈と第3大動脈弓を原基として発生する。内頸動脈低形成・無形成の発生を Lasjaunias は Segmental identity and vulnerability in cerebral arteries の概念を用いて説明している。<sup>3</sup> 内頸動脈は単一の血管ではなく、7つの発生学的に異なる segment の連続から成り立っているとされる。Segment の異常が生じた場合に遺残原始動脈が側副血行路として機能することが多く、異常の生じた segment に動脈の欠損や低形成が起こる。本症例は後交通動脈の発達を認めないことから terminal segment での形成不全が起こったものと考えられた。

Lie らは内頸動脈の低形成・無形成例における患側大脳半球への代償的な側副血行路について type A-F の6つに分類した。<sup>4</sup> 前交通動脈を介した患側大脳半球への側副血行路が発達するものを type B とした。本症例は後交通動脈が発達せず、患側中大脳動脈領域への側副血行路は前交通動脈が担っており、Lie 分類 type B に相当する。

内頸動脈低形成・無形成例は通常よりも高率に脳動脈瘤を合併すると報告されており、内頸動脈低形成と脳動脈瘤の合併については胎生期の発生異常と血流ストレス増大による二次的な発生が病因として推察される。<sup>1</sup>

内頸動脈低形成・無形成に合併した脳動脈瘤に対して脳動脈瘤コイル塞栓術を施行した報告は少ない<sup>1,5,6</sup> (Table 1)。さらに本症例は異所性右鎖骨下動脈と左右総頸動脈の共通管を伴っていた。異所性右鎖骨下動脈の頻度は0.16-4.4%とされる。<sup>2</sup> 頸動脈共通管は異所性右鎖骨下動脈に合併しやすく、その頻度は0.16-19.2%である。<sup>2</sup> 先天性心疾患を有する症例やダウン症などでは異所性右鎖骨下動脈の合併率が高く、<sup>2</sup> 発生過程での異常が示唆される。内頸動脈低形成と異所性右鎖骨下動脈の合併から、本症例の脳動脈瘤は血行力学的ストレスに加え発生異常の可能性も示唆された。今後も新たな脳動脈瘤の発生に注意が必要と考えられた。

本症例は複数動脈の破格を認めたが、ガイディングカテーテルの誘導には問題がなく、コイル塞栓術を施行することができた。今後はこのような症例に対してコイル塞栓術が選択されることが増えるかもしれない。

## 利益相反開示

本論文の発表に関して開示すべき COI はない。

## 文献

1. Lee JH, Oh CW, Lee SH, et al. Aplasia of the internal carotid artery. Acta Neurochir (Wien) 2003; 145: 117-125.

2. Natsis K, Didagelos M, Gkiouliava A, et al. The aberrant right subclavian artery: cadaveric study and literature review. *Surg Radiol Anat* 2017; 39: 559-565.
3. Lasjaunias PL. Segmental identity and vulnerability in cerebral arteries. *Interv Neuroradiol* 2000; 6: 113-124.
4. Lie TA. Congenital anomalies of the carotid arteries. Amsterdam: Excerpta Medica Foundation, 1968: 35-51.
5. Barbosa LG, Barbosa LA, Pimentel DP, et al. Bilateral agenesis of the internal carotid artery associated with basilar artery aneurysm treated via the endovascular route. A case report. *Interv Neuroradiol* 2010; 16: 89-92.
6. Kang HJ, Lee YS, Suh SJ, et al. A ruptured aneurysm at the infraoptic azygous anterior cerebral artery with the contralateral internal carotid artery agenesis treated by Y-stent assisted coil embolization. *J Cerebrovasc Endovasc Neurosurg* 2012; 14: 237-242.

## A Case of Unruptured Cerebral Aneurysm Treated with Coil Embolization Associated with Internal Carotid Artery Hypoplasia and an Aberrant Right Subclavian Artery

Takumi Yamada<sup>1</sup>, Toshiyuki Ohtani<sup>1</sup>, Kaie Kagoshima<sup>1</sup>, Hirochiyo Wada<sup>1</sup>, Rei Yamaguchi<sup>2</sup> and Yuhei Yoshimoto<sup>2</sup>

<sup>1</sup> Department of Neurosurgery, Fukaya Red Cross Hospital, 5-8-1 Kamishiba-cyo-nishi, Fukaya, Saitama 366-0052, Japan

<sup>2</sup> Department of Neurosurgery, Gunma University Hospital, 3-39-15 Showa-machi, Maebashi, Gunma 371-8511, Japan

### Abstract

We report a case of an unruptured cerebral aneurysm associated with internal carotid artery (ICA) hypoplasia and an aberrant right subclavian artery successfully treated with coil embolization. A 56-year-old female was referred to our hospital for a left unruptured ICA aneurysm with a bleb. She had no signs of neurological deficit. Computed tomography angiography and digital subtraction angiography revealed the presence of a right ICA hypoplasia and an aberrant right subclavian artery. The size of the aneurysm was 7.5×5.8 mm, and its neck was 3.6 mm. We treated the aneurysm with balloon-assisted coil embolization. Temporary endovascular balloon occlusion of the ICA was needed several times to finish the embolization. The aneurysm was completely obliterated, with no signs of neurological deficit after surgery. In the case of an ICA hypoplasia, the incidence of a cerebral aneurysm is suggested to be higher than in the general population due to the increase in the hemodynamic stress on the normally developed side. The coexistence of ICA hypoplasia and an aberrant right subclavian artery is rare. Accessibility limitations and ischemic tolerance must be considered when treating patients with congenital vascular anomalies via endovascular surgery.

### Key words:

unruptured aneurysm,  
internal carotid artery hypoplasia,  
aberrant right subclavian artery