

先天性心疾患におけるinterlocking detachable coilを用いた血管塞栓術

山口 幸子, 水野寛太郎

名古屋市立大学大学院医学研究科新生児・小児医学分野

Key words:

interlocking detachable coil, mechanically detachable coil, coil embolization, congenital heart disease, fenestration

Usefulness of Interlocking Detachable Coil for Embolization in Congenital Heart Disease

Sachiko Yamaguchi and Kantarou Mizuno

Department of Pediatrics and Neonatology,

Nagoya City University, Graduate School of Medical Sciences, Nagoya, Japan

Background: We report the usefulness of an interlocking detachable coil (IDC) for therapeutic embolization in pediatric cardiac patients.

Methods: Between January 1999 and April 2007, we performed 22 embolizations using IDC in 19 cases of congenital heart disease, including pulmonary arteriovenous fistula (PAVF), to avoid displacement or migration of the coil; closing the artificial vessel for fenestration after fenestrated Fontan operation, collateral vein and left superior vena cava (LSVC) after bidirectional Glenn (BDG) or Fontan operation, coronary artery fistula, aorto-pulmonary collateral artery (APCA), and PAVF.

Results: Nine embolizations were carried out for APCA in 8 cases, 2 embolizations for closing artificial vessel for fenestration after fenestrated Fontan operation in 2 cases, 6 embolizations for closing collateral veins and LSVC after BDG or Fontan operation in 6 cases, 4 embolizations for PAVF in 3 cases, and 1 embolization for coronary artery-RV fistulas in pulmonary atresia with intact ventricular septum. All embolizations were accomplished with no accidental release, no migration or recanalization, even if the embolized segment had a short length, a similar caliber throughout its length, or a high blood-flow stream.

Conclusions: The IDC, a controlled coiling and releasing embolization device, is both stable and safe as a result of creating an appropriate shape for stability, therefore it is useful for the segments of short length, similar caliber throughout their length, and high blood flow stream with low risk of migration or displacement in congenital heart disease.

要 旨

背景：これまでに小児循環器領域におけるinterlocking detachable coil(以下IDC)を用いた血管塞栓術についての報告は比較的少ない。

方法：1999年1月から2007年4月までの間に当院の小児循環器領域で先天性心疾患および肺動静脈瘻に対して施行した19例、延べ22回のIDCを用いた血管塞栓術について、後方視的にその塞栓効果、安全性を検討した。IDCの使用適応基準は、コイルの脱落や末梢側への流出が禁忌と考えられる以下の塞栓とした。① fenestrated Fontan症例の人工血管で作製されたfenestration, ② Fontan手術前後に発達した上大静脈側から肺静脈への側副静脈および左上大静脈, ③ bidirectional Glenn(以下BDG)手術後に発達した上大静脈側から体静脈への側副静脈, ④ 血流量の多いaorto-pulmonary collateral artery(以下APCA), major aorto-pulmonary collateral artery(以下MAPCA), ⑤ 冠動脈瘻, ⑥ 血流量の多い肺動静脈瘻。

結果：APCAおよびMAPCA(9回), 肺動静脈瘻(4回), fenestrated Fontan手術後のfenestrationのための人工血管(2回), Fontan手術前後の鎖骨下静脈から肺静脈への側副静脈(2回), BDG手術後に発達した冠静脈洞へ流入する左上大静脈(2回), BDG手術後に発達した鎖骨下静脈から体静脈への側副静脈(2回), 冠動脈-右室瘻(1回)の延べ22回の塞栓に対してIDCが用いられ、いずれもaccidental release, コイルの脱落や流出, 溶血, 再疎通を認めること

平成19年3月19日受付

別刷請求先：〒467-8601 名古屋市瑞穂区瑞穂町川澄1

平成20年9月25日受理

名古屋市立大学大学院医学研究科新生児・小児医学分野 山口 幸子

なく、安全かつ確実な塞栓が行われた。

結論：IDCを用いた塞栓術においては、形状、安定性を確認しながら塞栓血管に適合した留置コイルを作製することにより、血流量の多い血管や内径が均一な血管、留置部位に限られる血管においても固定性の良い安全な塞栓が可能であった。本方法は、先天性心疾患の塞栓治療において、上記の適応のようにコイルの脱落や流出が懸念される場合に有用であると考えられた。

緒 言

近年カテーテル治療の普及に伴い、広くコイル塞栓術が行われるようになったが、小児循環器領域でのinterlocking detachable coilを用いた血管塞栓術の報告は比較的少ない¹⁻⁴⁾。今回、当院の小児循環器領域で施行されたinterlocking detachable coil(以下IDC, Boston Scientific社製)を用いた血管塞栓術について、その安全性および効果を検討した。

対象と方法

対象は1999年1月から2007年4月までの間に、当院の小児循環器領域でIDCによる血管塞栓術を施行された先天性心疾患および肺動静脈瘻(pulmonary arteriovenous fistula: PAVF)の19例。塞栓部位および血流量からコイルの脱落や流出のリスクとその合併症が懸念され、他のpushable coil単独では塞栓が困難と考えられる場合、あるいはpushable coil単独よりも安全に効果的な塞栓が可能になると考えられる場合にdetachable coilの適応とし、そのコイル性状および着脱システムからIDCを選択した。IDCの使用適応基準は、コイルの脱落や末梢側への流出が禁忌となる ① fenestrated total cavopulmonary connection(以下fen.TCPC)症例の人工血管で作製されたfenestration, ② TCPC手術前後に発達した上大静脈側から肺静脈への側副静脈および左上大静脈, ③ bidirectional Glenn(BDG)後に発達した上大静脈側から体静脈への側副静脈, ④ 血流量の多いAPCA, MAPCA, ⑤ 冠動脈瘻, ⑥ 血流量の多いPAVFに対する塞栓とした。今回の検討では、追加留置時にIDCのほかにpushable coilを併用した症例を含んだ。

施行時年齢は日齢18～23歳(中央値2歳8カ月)、施行時体重は2.2～48.0kg(中央値12.8kg)であった。

塞栓方法は以下のとおりである。シース挿入時にヘパリンナトリウム100単位/kgを投与した。3～5Frのマルチパーパスカテーテルまたは左、右冠動脈用カテーテルをガイディングカテーテルとし、選択的造影により塞栓血管の径とコイルを留置する位置を確認のもと、留置するIDCのサイズを検討した。安定性の良い

留置とするために、最初に留置するIDCとして、コイル径は血管径の110～150%に相当する血管径より1～2mm大きいサイズ、コイル長は十分な巻き数が得られるように10～20cmのサイズを選択した。マイクロカテーテルに続いて、先端にコイルを連結したデリバリーワイヤーを塞栓部位まで進め、デリバリーワイヤーとマイクロカテーテルを協調的に操作して塞栓部位でコイルを形成、作製したコイルの形状と安定性を十分に確認したうえでリリースした。さらに必要に応じ、これをanchor coilとして間隙を埋めるように追加の留置を行った。追加留置の際には塞栓の状況に応じてIDCあるいはfibered pushable coilを選択した。

結 果

塞栓血管は、APCA, MAPCA(8例, 延べ9回), PAVF(3例, 延べ4回), fen.TCPC後のfenestrationのための人工血管(2例2回), TCPC前後の鎖骨下静脈から肺静脈への側副静脈(2例2回), BDG後に発達した冠静脈洞へ流入する左上大静脈(2例2回), BDG後に発達した鎖骨下静脈から体静脈への側副静脈(2例2回), 冠動脈-右室瘻(1例1回)であった(Table 1)。施行回数は延べ22回であり、複数回施行例は、症例3[pulmonary atresia with intact ventricular septum(以下PAIVS), MAPCA症例のMAPCAに対する塞栓を日齢18時と11カ月時の計2回施行], 症例8[PAIVS, 類洞交通(sinusoidal communication: SC)症例の2歳時冠動脈-右室瘻に対する塞栓1回とfen.TCPC後の7歳時fenestrationの人工血管に対する塞栓1回の計2回施行], 症例13[PAVF症例に対して11歳時と13歳時の計2回施行]の3例であった。IDCを使用したこれらの19例、延べ22回の塞栓術すべてにおいて、塞栓後の造影で遺残短絡を認めることなく完全な塞栓が得られた。

APCA, MAPCAに対し施行された8例(9回)では、いずれも血流量が多く供給領域が広い側副静脈に対して遠位へのコイル流出を防ぎ効果的な塞栓とするために、特にMAPCAでは有効末梢肺血管へのコイル流出を防ぐためにIDCの適応とされた。Fontan適応が3例(4回)、二心室治療適応が5例(症例5～7, 9, 18)(5回)であった。Fontan適応では、新生児期とBDG前の

Table 1 List of patients enrolled in the study

No.	Diagnosis	Age at embolism	Vascular lesion to be embolized
1	SRV post BDG	2 y	LSVC flow into CS
2	SRV post BDG	1 y 9 m	LSVC flow into CS
3	PAIVS, MAPCA	18 d	MAPCA
		11 m	MAPCA
4	SRV post BDG	3 y	APCA
5	VSD, Sequestration	1 y 6 m	MAPCA
6	TOF	1 y	APCA
7	TOF	4 y	APCA
8	PAIVS, SC post BDG	2 y	coronary artery-RV fistulas
	post fen.TCPC	7 y	artificial vessel for fenestration
9	TOF, MAPCA post BT	23 y	MAPCA
10	PAIVS post BDG	1 y	collateral vein from SVC to PV
11	PAVF	14 y	PAVF
12	SRV post BDG	2 y 1 m	collateral vein from SVC to systemic vein
13	PAVF	11 y	PAVF
		13 y	PAVF
14	SRV post BDG	2 y 4 m	collateral vein from SVC to systemic vein
15	PAIVS post fen.TCPC	5 y	artificial vessel for fenestration
16	TS, PA post TCPC	5 y 5 m	collateral vein from SVC to PV
17	PAVF	11 y	PAVF
18	TOF	1 y 11 m	APCA
19	AVSD, TGA post TCPC	7 y 5 m	APCA

SRV: single right ventricle, BDG: bidirectional Glenn, PAIVS: pulmonary atresia with intact ventricular septum, MAPCA: major aorto-pulmonary collateral artery, VSD: ventricular septal defect, APCA: aorto-pulmonary collateral artery, TOF: tetralogy of Fallot, SC: sinusoidal communication, BT: Blalock-Taussig shunt, PAVF: pulmonary arteriovenous fistula, fen.TCPC: fenestrated total cavopulmonary connection, TCPC: total cavopulmonary connection, TS: tricuspid stenosis, PA: pulmonary atresia, AVSD: atrioventricular septal defect, TGA: transposition of the great arteries, LSVC: left superior vena cava, CS: coronary sinus, SVC: superior vena cava, RV: right ventricle, PV: pulmonary vein

MAPCA(症例 3), BDG後のAPCA(症例 4), TCPC後のAPCA(症例 19)に対する塞栓が各 1 例ずつであった。二心室治療適応では、1 例がMAPCA(症例 9), 4 例がAPCAであった。外科手術前の症例ではいずれもコイル塞栓術により主要な側副動脈の完全塞栓が得られ、その後側副動脈の影響を受けることなく外科手術が施行された。

PAVFに対し施行された 3 例(4 回)では、血流量の多い巨大PAVFであったことから左心系、体循環へのコイル流出を防ぐためにIDCの適応とされた。巨大PAVFの塞栓術後 3 例とも酸素飽和度の上昇が得られた。

fen.TCPC後の人工血管で作製されたfenestrationに対し施行された 2 例(2 回)では、血管径の均一な人工血管の塞栓に対してコイルの脱落を防ぐためにIDCの適応とされた。術後完全閉塞によりfenestrationでの右左

シャントは消失し、酸素飽和度はそれぞれ93%から98%へ(症例 8), 91%から95%へ(症例 15)上昇した。

BDG後に発達した冠静脈洞へ流入する左上大静脈に対し施行された 2 例(症例 1, 2), BDG後に発達した鎖骨下静脈から体静脈への側副静脈に対し施行された 2 例(症例 12, 14), TCPC前後の鎖骨下静脈から肺静脈への側副静脈に対し施行された 2 例(症例 10, 16)では、血管径の均一な左上大静脈や側副静脈の塞栓に対して左心系、体循環へのコイル流出を防ぐためにIDCの適応とされた。それぞれ塞栓術の前後で肺動脈圧の変化をみることなく、塞栓術後肺動脈血流のsteal回避により酸素飽和度の上昇が得られた。TCPC術前症例では、コイル塞栓術により酸素飽和度が上昇した状態からいずれも後にTCPCに到達した。

冠動脈-右室瘻に対し施行された 1 例(1 回)では、冠動脈本幹へのコイル脱落を防ぐためにIDCの適応と

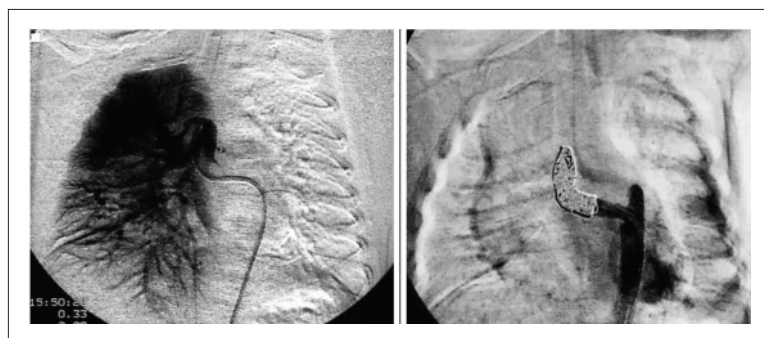


Fig. 1 a: Selective angiogram showing a 3 Fr multipurpose catheter in the right major aortopulmonary collateral artery (MAPCA) originating from descending aorta in case 3. b: After placement of interlocking detachable coil (IDC), the proximal site of the MAPCA was occluded completely.

された。コイルの脱落や流出を認めることなく冠動脈は塞栓され、冠動脈遠位部の血流改善が得られた。

コイル留置中のaccidental release, 留置困難に伴う他のデバイスへの変更, 留置後にコイルの脱落や流出, 溶血を認めた例や, detach後にコイルの回収を要した例はいずれもみられなかった。また, detachに伴う有害事象は認められなかった。遠隔期に造影検査が行われた10例において, 再疎通を認めた例はなかった。巨大PAVFの1回(4.5%)にコイル留置後の発熱を認められたが, 経過観察により軽快した。

以下に具体例を3症例呈示する(Table 1)。

1. 症例3

日齢18, 体重2.2kgのPAIVS, MAPCA(右室はtripartiteでない)。下行大動脈から起始し右肺へ分布する太いMAPCAにより著明な肺血流増加と多呼吸を来したため, 遠位側で他の肺血管と交通を有することを確認したうえで, 多呼吸の原因となるMAPCA起始部の塞栓が行われた。血流量が多く, コイルが遠位側に流出した場合の有効末梢肺血管の閉塞が懸念されたことから, MAPCA起始部に限局した留置とするためにIDCの適応とされた。3Frマルチパーパスカテーテルのガイディング下に, 塞栓血管径6.8mmに対して8mm/20cm, 6mm/15cm, 5mm/15cm, 4mm/12cmのIDCが使用され, コイルの脱落や大腿動脈閉塞等の合併なくMAPCA起始部の完全な塞栓が得られた(Fig. 1)。塞栓後は呼吸状態, 体重増加とともに安定し, 4カ月時にleft modified Blalock-Taussig shuntを施行, 11カ月時にその他のMAPCAに対するコイル塞栓術を追加してBDGが施行された。

2. 症例8

2歳, PAIVS, SC(右室はtripartiteでない)のBDG術後。両側冠動脈起始部に離断や狭窄は認めず冠動脈血

流は大動脈側より供給されており, 両側冠動脈-右室瘻でのstealにより遠位側の冠動脈が狭小であったことから, 両側冠動脈-右室瘻に対するコイル塞栓術が行われた。冠動脈本幹へのコイル脱落のリスクを考慮しIDCの適応とされた。右冠動脈-右室瘻に対して5mm/15cm, 4mm/12cmのIDC, 左冠動脈-右室瘻に対して9mm/20cm, 4mm/12cm, 4mm/8cm, 3mm/10cm, 3mm/8cmのIDCが使用され, コイルの脱落や流出等の合併なく塞栓術が得られた。塞栓から1年後の冠動脈造影で, 両側冠動脈ともに塞栓部位より遠位の描出改善を認めた(Fig. 2)。以後左心室の機能低下を来すことなく, fen.TCPCを施行。fen.TCPCの1年後に, 直径4mmの人工血管によるfenestrationに対して6mm/20cmのIDCを用いた塞栓術が行われ, 酸素飽和度は93%から98%へ上昇した。

3. 症例15

5歳, PAIVSのfen.TCPC術後。直径5mmの人工血管で作製されたfenestrationは両方向性のシャントとなり, バルーン閉塞試験にて中心静脈圧, 大動脈圧および心拍出量に変化を認めないことからfenestration閉鎖の適応と判断し, fenestrationに対するコイル塞栓術が施行された。長軸方向に血管径が均一でかつ長さの短い人工血管であることから, コイルの脱落や流出を懸念してIDCの適応とされた。7mm/20cm, 6mm/10cmのIDCを用いて塞栓が行われfenestrationでのシャントは消失, 酸素飽和度は91%から95%へ上昇した(Fig. 3)。

考 察

先天性心疾患におけるコイル塞栓術では, 一般にpushable coil, detachable coil等が用いられる。このうちIDCは, コイルとデリバリーワイヤーの連結がinterlocking構造になったmechanically detachable coilであり, デリバリーワイヤーのマーカがマイクロカテー

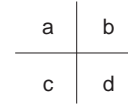
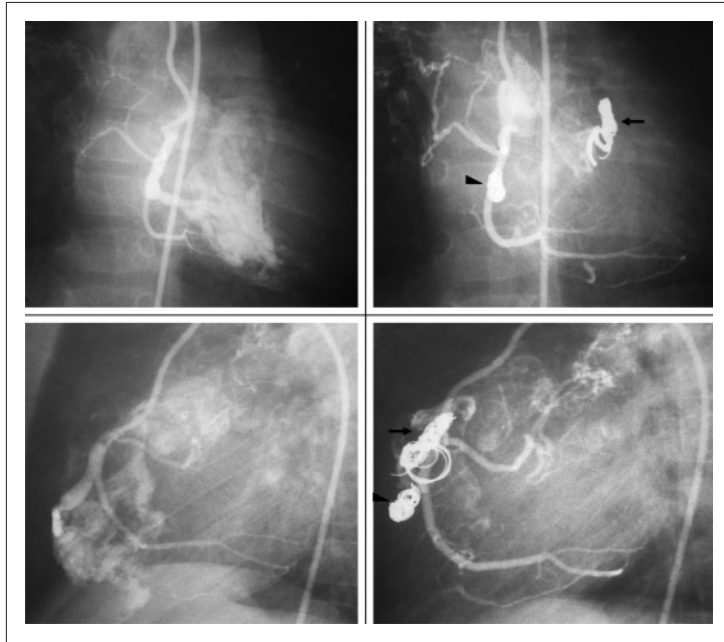


Fig. 2A The right coronary angiogram in case 8 with (a and b) in frontal view and (c and d) in lateral view.

a and c: Right coronary artery (RCA)-right ventricle (RV) fistula.

b and d: One year after embolization of the RCA-RV fistula using IDC. The filling of the posterior descending branch is better than before embolization. IDC placed for embolization of the RCA-RV fistula (arrowheads). IDC placed for embolization of the left coronary artery (LCA)-RV fistula (arrows).

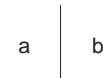
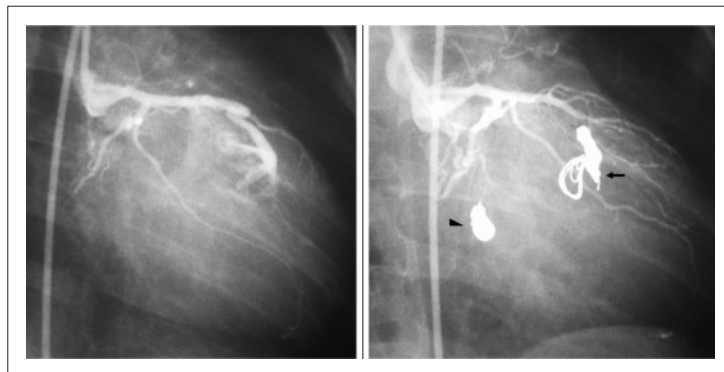


Fig. 2B Frontal view of the left coronary angiogram in case 8.

a: LCA-RV fistula.

b: One year after embolization of the LCA-RV fistula using IDC. The filling of the branches of left anterior descending artery is better than before embolization. IDC placed for embolization of LCA-RV fistula (arrow). IDC placed for embolization of the RCA-RV fistula (arrowhead).

テルのマーカ-に到達したところでinterlocking armが外れ、コイルがリリースされる仕組みになっている (Fig. 4)。この連結システムによりaccidental releaseが起りにくく、コイルを完全にリリースするまで何度でも引き戻してコイル形状を作り直すことが可能である。加えて、コイル部分の柔軟性によりコイルの形状操作を行いやすいという特徴を有することから、塞栓血管に合った適正なコイル形状の作製と、形状と安定性を十分に確認したうえでのリリースが可能であり、controlled coiling and releasing embolization deviceと言える。コイルの脱落や流出が問題となる場合の塞栓ではdetachableタイプが安全であると考えられ、以上の特徴からわれわれはIDCを用いることとした。

その特徴を生かし安定性の高い塞栓とするために最

初に留置するIDCのサイズおよび形状が重要であると考え、最初の留置コイルとして、コイル径は血管径の110~150%に相当する血管径より1~2mm大きいサイズ、コイル長はリリースまでに十分な巻数が得られ安定性の確認が可能となる10~20cmを選択し、塞栓部位で固定性の良い緻密な編みかご型のコイル形状を作製した。さらに追加留置が必要な場合は、これをanchor coilとしてその間隙を埋め、コイル内部が密度の高い形状となるように追加のIDC留置を行った。IDC留置の際には、コイルの安定性のために、最初の留置コイルの巻き方がらせん状になることなく編みかご型となることが重要であり、塞栓効果のためにはanchor coilとその内部がより緻密になるように、マイクロカテーテルとデリバリーワイヤーの協調操作によりコイルを

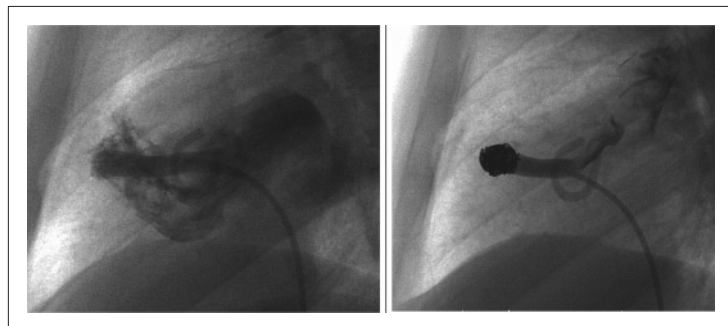


Fig. 3 a: An angiogram showing a 4 Fr multipurpose catheter in the artificial vessel for fenestration in case 15 with a visualized shunt at the artificial vessel.
b: An angiogram after the placement of IDC in the artificial vessel. The fenestration was completely occluded.

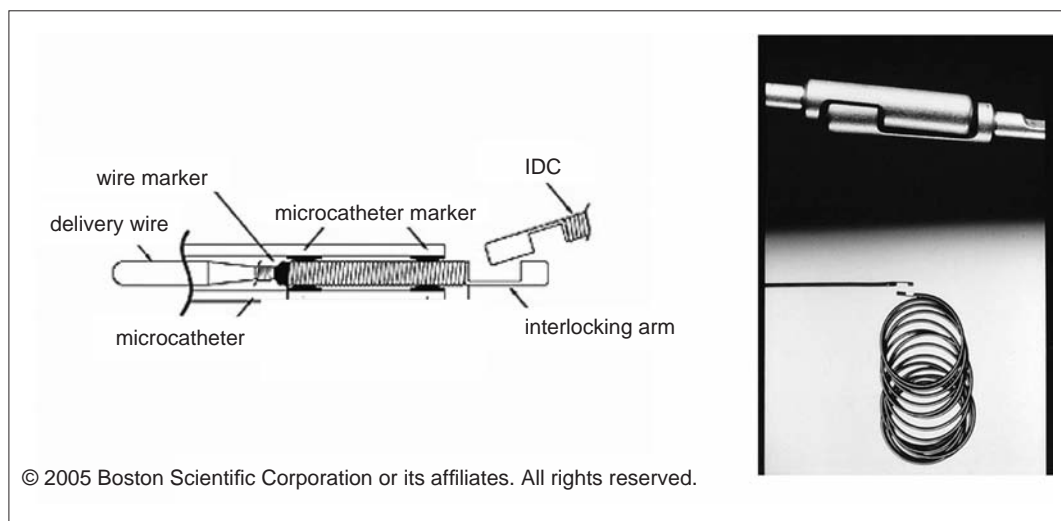


Fig. 4 The IDC has a mechanical connection with its pusher wire at the interlocking arms. When the marker of the pusher wire crosses the point of the second marker at the end of the microcatheter, the coil is released from the interlocking arms.

密度高くtightにpackingすることが肝要であり、これらにより短い距離での完全閉塞が可能になると考えられた。また、追加留置の際にfibred coilを併用することも有効と考えられた。

以上のようにIDCは操作性に優れ、目標とした位置への固定留置が可能であるという利点を有するが、unfibred coilであることから、完全塞栓のためには多数のコイルを要する場合がある。これについてはコイル留置の際に密度高くpackingすることやfibred coilを併用することにより改善可能な部分があり、外科手術による治療介入が困難な場合や外科手術治療を回避するための手段とする場合、十分に有効な塞栓方法であると考えられる。

コイルの脱落や流出が懸念された症例に対し、IDCによるコイル塞栓術を行った今回のわれわれの検討で

は、全例で合併症を認めることなく完全閉塞が可能であった。また、コイルのdetachに伴う有害事象は認められなかった。施行症例数が少なく、コイル塞栓術施行症例の個々の条件に差があること、さらに、手技中に他のデバイスに変更したケースはなかったことから、他のコイルとの比較は十分に行い得ないが、KungらによるTornado coil(Cook社製)を用いた冠動脈瘻に対するコイル塞栓術の報告では、肺動脈へのコイル流出の合併症例を認めたとされている⁵⁾。また、AndrewsらによるBDG後の側副静脈に対するdetachable MReye coil(Cook社製)を用いたコイル塞栓術の報告では、コイルのコントロールに優れているとして全例で合併症なく塞栓を得られている⁶⁾。Sanataniらは、Weckクリップを半周付けたGore-Tex graft fenestrationに対するdetachable coil(Cook社製)を用いた塞栓術について⁷⁾、

またZahnらは、Gianturcoを用いたfenestrationに対するコイル塞栓術について⁸⁾おのおの報告している。先天性心疾患における血管塞栓治療は、塞栓部位や血管形態、血流量がさまざまである。それぞれの症例に対し、各デバイスでの安全性、有効性および経済性を検討したうえで、最も適合するデバイスを選択することが重要と考えられる。特に、コイルの脱落や流出が問題となる場合にはdetachableタイプが望ましいとされる。今回の検討では、コイルの留置範囲が限定される場合やコイルの脱落が危惧される塞栓において、IDCを用い血管に合わせた固定性の良い密度の高いコイル形状を形成することにより、コイルの脱落や流出のリスクを低く保ち高い塞栓効果が得られている。小児循環器領域においては血流量の多いMAPCAや短い距離の冠動脈瘻、長軸方向に内径が均一な人工血管やFontan手術前後の肺静脈、体静脈への側副静脈等の塞栓に対して、IDCを用いたコイル塞栓術により安全で効果的な塞栓が可能となる場合があると考えられた。

結 語

Interlocking detachable coilを用いた塞栓術では、マイクrocカテーテルとデリバリーワイヤーを協調的に操作して塞栓血管に合わせた適切な形状のコイルを形成することにより、高い安定性と塞栓効果が得られた。小児循環器領域での塞栓治療においては、血流量の多い血管、人工血管を含む長軸方向に内径が均一な血管、留置部位が短い距離に限定される血管等のコイルの脱落や流出が危惧される場合に適応が検討される有用な

塞栓方法の一つであると考えられた。

【参考文献】

- 1) Reidy JF, Qureshi SA: Interlocking detachable platinum coils, a controlled embolization device: early clinical experience. *Cardiovasc Intervent Radiol* 1996; **19**: 85–90
- 2) De Wolf D, Terriere M, De Wilde P, et al: Embolization of a coronary fistula with a controlled delivery platinum coil in a 2-year-old. *Pediatr Cardiol* 1994; **15**: 308–310
- 3) Ogoh Y, Akagi T, Abe T, et al: Successful embolization of coronary arteriovenous fistula using an interlocking detachable coil. *Pediatr Cardiol* 1997; **18**: 152–155
- 4) Kawata T, Hasegawa J, Yoshida Y, et al: Usefulness of interlocking detachable coil for embolization of the major aortopulmonary collateral artery: a case report. *Cathet Cardiovasc Diagn* 1995; **34**: 362–364
- 5) Kung GC, Moore P, McElhinney DB, et al: Retrograde transcatheter coil embolization of congenital coronary artery fistulas in infants and young children. *Pediatr Cardiol* 2003; **24**: 448–453
- 6) Andrews RE, Tulloh RM, Anderson DR: Coil occlusion of systemic venous collaterals in hypoplastic left heart syndrome. *Heart* 2002; **88**: 167–169
- 7) Sanatani S, Sett SS, Human DG, et al: Extracardiac Fontan operation with tube fenestration allowing transcatheter coil occlusion. *Ann Thorac Surg* 1998; **66**: 933–934
- 8) Zahn EM, Chang AC, Burke RP, et al: Transcatheter closure of an extracardiac Fontan fenestration. *Ann Thorac Surg* 1998; **66**: 260–262