

症例報告

大動脈起始椎骨動脈を伴う左後下小脳動脈瘤破裂

木村誠吾¹ 矢木亮吉² 中瀬健太³ 小川大二¹ 萬野理¹ 山田圭一¹ 谷口博克¹ 鰐淵昌彦²

弘善会矢木脳神経外科病院¹

大阪医科大学脳神経外科・血管内治療科²

奈良県立医科大学脳神経外科³

連絡著者

木村誠吾 弘善会矢木脳神経外科病院 脳神経外科

537-0011 大阪府大阪市東成区東今里2-12-13

06-6978-2307

neu158@osaka-med.ac.jp

キーワード

くも膜下出血 後下小脳動脈瘤 cortical segment NBCA 大動脈起始椎骨動脈

本論文を、日本脳神経血管内治療学会機関誌 JNET Journal of Neuroendovascular Therapy に投稿するにあたり、筆頭著者、共著者によって、国内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないことを誓約致します。

「和文要旨」

「目的」大動脈起始椎骨動脈を伴う遠位後下小脳動脈cortical segmentに生じた脳動脈瘤は極めてまれである。同脳動脈瘤破裂によるくも膜下出血に対し血管内治療を行ったため報告する。「症例」68歳女性。頭痛を自覚したため救急搬送となった。精査にて左鎖骨下動脈より遠位から起始する大動脈起始左椎骨動脈を伴う、後下小脳動脈瘤破裂(cortical segment)を認めた。同脳動脈瘤母血管に13%NBCAを0.01cc投与し、良好な経過を得た。「結論」同脳動脈瘤に対する血管内治療は有用な選択肢であると考えられた。

「緒言」

後下小脳動脈瘤 (posterior inferior cerebellar artery aneurysm: PICA AN) は比較的稀であり、椎骨動脈後下小脳動脈分岐部脳動脈瘤 (vertebral artery-posterior inferior cerebellar artery aneurysm: VA-PICA AN) より末梢部に生じた遠位後下小脳動脈瘤 distal PICA AN は非常に稀である。特に distal PICA AN の中でも、cortical segment (CS) に発生した動脈瘤 (CSAN) は少ない。

また、大動脈起始椎骨動脈、特に左鎖骨下動脈より遠位から起始する大動脈起始椎骨動脈を伴う CSAN の報告は極めてまれである。

我々は左鎖骨下動脈より遠位から起始する大動脈起始椎骨動脈を伴う CSAN 破裂によるくも膜下出血を経験し、血管内治療を行い良好な経過を得たため報告する。

「症例呈示」

68歳女性。前日21時に頭痛を自覚したが様子を見ていた。翌朝頭痛が増強したためかかりつけの前医に救急搬送され、頭部CTでくも膜下出血を認めたため当院に転送となった。当院来院時、神経学的所見はJCS1、明らかな四肢麻痺は認めず、嘔吐を認めた。身体所見は体温36.5度、血圧170/88mmHg、脈拍88/分であった。既往歴として高血圧を認めた。頭部CTでくも膜下出血 (Fisher group 3, WFNS grade II, Hunt & Kosnik grade II)、脳室内出血を認めた (Fig. 1A,B)。頭部CTAでLt. PICA cortical segmentに動脈瘤様所見を認めた (Fig. 1C)。引き続いて行った脳血管撮影で左椎骨動脈以外の撮影で明らかな出血源となる異常を認めなかった。左鎖骨下動脈撮影を行ったところ左椎骨動脈を認めず、左椎骨動脈は大動脈起始であった。Lt. VAをカテーテルで選択

することに難渋し、Lt. VAGを行うことができなかった。確認のためLt. VAGを除く全てのvesselでも3D撮影を行ったことなどもあり、この時点で造影剤を300ccと多量に使用していたためaortagramは行わず、ひとまず撤退する方針とした。脳血管撮影後に行った頭部CTで脳室拡大を認めたため緊急脳室ドレナージ術を行いSCUで管理を行った。造影剤を多量に使用したが腎機能悪化は認めなかった。Day3に頭頸部CTAを行ったところ椎骨動脈は左鎖骨下動脈より遠位から起始する大動脈起始椎骨動脈であった(Fig1D)。引き続き脳血管撮影を行ったところLt. PICA cortical segmentにpearl and string signを確認でき、同日血管内治療を行った(Fig2)。

全身麻酔下に6Fr Roadmaster(GOODMAN CO., LTD., Aichi, Japan)を左椎骨動脈V1 segmentに誘導し、4Fr Cerulean (Medikit Co., Ltd, Tokyo, Japan)を左椎骨動脈V2 segmentに誘導した。Traxcess (Terumo Corporation, Tokyo, Japan)を用いて動脈瘤母血管であるLt.PICA cortical segmentにSL-10 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA)の誘導を試みた(Fig. 3AB)。動脈瘤母血管の分岐部にSL-10のledgeが引っかかり治療対象血管に誘導できなかったが、RoadmasterとCeruleanをできるだけ高位に誘導し、支持性を上げることで目的の血管を選択できた。13%NBCAを0.01cc投与し動脈瘤および母血管を塞栓した(Fig. 3C)。NBCAの遠位部へのmigrationや明らかな逆流は認めなかった(Fig3D)。術翌日頭部MRIで左小脳半球に一部新規脳梗塞を認めた(Fig4)。明らかな脳血管攣縮は認めずDay64にmRS3で回復期病院に転院となった。

「考察」

PICA ANは全脳動脈瘤の0.49~3%を占め、比較的稀である¹。PICA ANの約2/3はVA-PICA ANであり、それより末梢部に生じたdistal PICA ANは全脳動脈瘤の0.28~0.7%と非常に稀である²。distal PICA ANの中でも、動脈瘤はtelovelotonsillar segmentに発生することが多くcortical segmentに発生したものは少ない²。distal PICA ANは小型でsaccular typeが多くfusiform typeは少ないがそのほとんどが解離性動脈瘤とされる³。fusiform aneurysmはdistal PICAにおいてYamamotoら⁴は6例中1例に、Ishikawaら⁵は12例中1例に見られたと報告しており、distal PICA ANの特徴であるとする報告もある⁶。fusiform aneurysmは動脈硬化性病変を基盤として発生するとされ⁷、稀に内弾性板異常や中膜欠損といった先天性要因に合併する報告も見られる⁸。Nishinoら⁶は、distal PICA ANの術中所見で親動脈の動脈硬化性変化は認め

ず、既往歴に頭部外傷、感染症、心疾患がなく、組織学的に中膜、内弾性板低形成が認められた症例を報告し、先天性要因に基づく動脈壁の虚弱性から発生したものと考察している。

distal PICA ANは発生過程でのバリエーションとの関連性が報告されており、その成因として hemodynamic stress が指摘されている。関連する血管奇形、破格として AVM⁹、primitive trigeminal artery¹⁰、primitive hypoglossal artery¹¹、direct aortic origin of the vertebral artery¹¹、AICA-PICA anastomotic channels¹²、hypoplasia of the PICA¹³、megadolicho-basilar artery¹⁴、telangiectasia¹⁵、branching variation that was feeding the bilateral hemispheres¹⁶が報告されている。大動脈起始椎骨動脈は VA の最も頻繁な variant(有病率 2.4-5.8%、脳血管造影が行われた患者の 2.4-2.5%、頭蓋外脳血管疾患が疑われる患者の 5.25%)である¹⁷。VA は通常 7 つの intersegmental artery をつなぐ longitudinal anastomosis により形成される。Intersegmental artery は鎖骨下動脈に発達する 7 番目の intersegmental artery を除き消退するが、6 番目と 7 番目の intersegmental artery 間の吻合が左側に発達しなかった場合、6 番目の intersegmental artery が残存し、Lt.VA は総頸動脈 (common carotid artery: CCA) と左鎖骨下動脈 (left subclavian artery: Lt.SA) の間の大動脈弓から生じる。頸部背側では、C1-C7 間の longitudinal anastomosis と、頸部の intercostal obliteration zone で postcostal longitudinal anastomosis として Lt.VA が形成される。頸椎の発達に伴い postcostal longitudinal anastomosis が残存する場合、Lt.VA は Lt.SA 以遠に生じる可能性があり、8 番目あるいは 9 番目の intersegmental artery が残存したものと考えられている¹⁸。大動脈起始左椎骨動脈の中で CCA と Lt.SA の間の起始が最多(81.9%)であり、左鎖骨下動脈より遠位から起始するものの頻度は低い(3.9%)とのことである。本症例において、左鎖骨下動脈撮影で左椎骨動脈が描出されなかったことから大動脈起始椎骨動脈が想定されたが、同血管が CCA-Lt.SA 間以外から起始する可能性も含めて考慮する必要があると思われる。Komiya らは大動脈起始左椎骨動脈患者の Lt.VA dissection 発症率は 19.0%であり、鎖骨下動脈起始 VA dissection と比較して有意に高いと報告している¹⁹。大動脈起始椎骨動脈を伴う distal PICA AN の報告は我々が渉猟しうる限り Gyula ら²⁰の報告する PICA posterior medullary segment の動脈瘤のみであった。Gyula らの症例の大動脈起始左椎骨動脈が具体的に大動脈のどの位置から起始していたかの記載はないが、左鎖骨下動脈よ

り遠位から起始する大動脈起始左椎骨動脈が CCA と Lt. SA の間から起始するものより著明に頻度が低いことを考えると、我々の報告する大動脈起始左椎骨動脈を伴う CSAN の症例は、極めて稀な一例と思われる。

我々の症例では血管内治療が選択されたため病理学的検討が行われていないが、同一血管に連続する2箇所の fusiform aneurysms であることや、大動脈起始椎骨動脈を伴っており、構造上の hemodynamic stress により発生した解離性病変である可能性が高いのではないかと考えられた。しかし hemodynamic stress 単独の原因であれば distal PICA に dissection が発生するよりもその上流にある VA dissection が引き起こされる可能性が高いと思われる。Nishino らによる中膜、内弾性板低形成という先天的な動脈壁の脆弱性から発生した dissecting aneurysm の報告⁸や、Hiscott ら¹⁵が PICA は anomaly の発生頻度の高い動脈であると報告していることもあり、distal PICA AN の fusiform aneurysm は、hemodynamic stress 以外に元々の動脈壁の脆弱性を伴い生じた可能性が高いのではないかと考えられた。

治療法は直達手術 (trapping) と血管内治療があり、前者の長所は直視下に確実に治療可能で、開頭手術ではあるが深部病変ではないため侵襲はわずかであり、場合によって OA-PICA bypass の追加が可能な点である。短所は、低いとはいえ侵襲が加わることや、術中腹臥位とする点である。後者の長所は開頭手術以上に低侵襲であり、脳血管撮影検査に引き続き速やかに治療可能であることである。短所は分枝にマイクロカテーテル誘導が困難な場合もあることや、NBCA などの液体塞栓物質を選択した場合末梢や他血管への塞栓物質 migration の可能性があることが挙げられる。我々の施設には血管内治療医が複数在籍し、血管内治療が迅速に施行可能な体制であったため、治療方法として低侵襲である血管内治療をまず選択した。治療対象血管をマイクロカテーテルで選択することに難渋したため、治療困難と判断した場合は速やかに直達手術への変更を考慮した。幸いマイクロカテーテルを誘導できたため予定通り治療を行うことができた。末梢の紡錘状動脈瘤で解離性動脈瘤と判断したため、母血管閉塞すべく塞栓物質として NBCA を用いた。母血管閉塞により術後脳梗塞を認めたが、末梢血管であり著明な脳腫脹をきたすことなく良好に経過した。CSAN に対する血管内治療の報告は我々が渉猟しうる限り我々の症例が初めての報告であった。NBCA を用いた血管内治療は今回のような症例に対しては保険適応外使用になるが治療方法の一つとして有用と考えられた。

「結語」

Lt. SA以遠より生じる大動脈起始椎骨動脈を伴うCSAN破裂によるくも膜下出血を経験し、血管内治療を行い良好な経過を得た。今回の症例におけるdistal PICAのdissectionが疑われる所見は大動脈起始椎骨動脈によるhemodynamic stressと、先天的な壁構造の脆弱性が関連している可能性が考えられた。CSANに対してNBCAを用いた血管内治療は有用な選択肢であると考えられた。

「利益相反開示」

筆頭著者及び共著者全員かに利益相反はない。

「文献」

1. Tabatabai SA, Zadeh MZ, Meybodi AT, et al: Extracranial aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery with an aberrant origination: case report. *Neurosurgery* 2007; 61: 1097-1098
2. Watanabe M, Inokuchi Sei, Kawamura K, et al: Ruptured aneurysms in the cortical segment of the distal posterior inferior cerebellar artery: a report of two cases and a literature review. *No Shinkei Geka* 2019; 47(6): 673-681
3. Bertalanffy H, Benes L, Heinze S, et al: Surgical management of aneurysms of the vertebral and posterior inferior cerebellar artery complex. *Schmidek and Sweet Operative Neurosurgical Techniques*. W B Saunders Co. Philadelphia 2006; 1209-1223
4. Yamamoto I, Tsugane R, Ohya M, et al: Peripheral aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery. *Neurosurgery* 1984; 15: 839-845,
5. Ishikawa T, Suzuki A, Yasui N: Distal posterior inferior cerebellar aneurysms; Report of 12 cases. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 1990; 30: 100-108.
6. Nishino A, Sakurai Y, Satoh H, et al: Aneurysms of the distal posterior inferior cerebellar artery: the report of 10 cases. *No Shinkei Geka* 1991; 19: 925-932,

7. Shokunbi MT, Vinters HV, Kaufmann JC, et al: Fusiform intracranial aneurysms. Clinicopathologic features. *Surg Neurol* 1988; 29: 263-270
8. van Donselaar CA, Stefanko SZ, van der Kwast TH, et al: Basilar artery giant fusiform aneurysms caused by congenital defect of the internalelastic lamina and media. *Clin Neuropathol* 1988; 7: 68-72
9. Hudgins RJ, Day AL, Quisling RG, et al: Aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery. A clinical and anatomical analysis. *J Neurosurg* 1983; 58: 381-387
10. Kamada K, Sasaoka Y, Nakaue Y, et al: Aneurysms of the distal posterior inferior cerebellar artery. *Surg Cereb Stroke* 1994; 22: 277-284
11. Zingale A, Chiaramonte I, Consoli V, et al: Distal posterior inferior cerebellar artery saccular and giant aneurysms: report of two new cases and a comprehensive review of the surgically-treated cases. *J Neurosurg Sci* 1994; 38: 93-104
12. Kojima A, Nakamura T, Takayama H, et al: A case of de novo aneurysm of the distal posterior inferior cerebellar artery with intraventricular hemorrhage. *No Shinkei Geka* 1996; 24: 469-473
13. Hiscott P, Crockard A: Multiple aneurysms of the distal posterior inferior cerebellar artery. *Neurosurgery* 1982; 10: 101-102
14. Niiijima K, Yonekawa Y, Leonard IM, et al: Distal posterior inferior cerebellar artery aneurysm associated with a Megadolichobasilar anomaly: report of a case. *Jpn J Neurosurg (Tokyo)* 1992; 1: 70-74
15. Leblanc R, Blundell JE: Aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery presenting as intraventricular hemorrhage in a child: report of a case with survival. *Can J Neurol Sci* 1980; 7: 301-304
16. Matsushita Y, Kawabata S, Kamo M, et al: Ruptures aneurysm at the cortical segment of the posterior inferior cerebellar artery. *J Clin Neurosci* 2006; 13: 777-781
17. Yuan SM: Aberrant Origin of Vertebral Artery and its Clinical Implications. *Braz J Cardiovasc Surg* 2016; 31: 52-59
18. Satti SR, Cerniglia CA, Koenigsberg RA: Cervical vertebral artery variations: An anatomic study. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2007; 28: 976-980

19. Komiyama M, Morikawa T, Nakajima H, et al: High incidence of arterial dissection associated with left vertebral artery of aortic origin. *Neurol Med Chir(Tokyo)* 2001; 41, 8-12
20. Gacs G, Vinuela F, Fox AJ, et al: Peripheral aneurysms of the cerebellar arteries. Review of 16 cases. *J Neurosurg* 1983; 58: 63-68

「画像」

Fig. 1

頭部CTでくも膜下出血(Fisher group3, WFNS grade II, Hunt & Kosnik grade II)、脳室内出血を認めた(A, B)。頭部CTAでLt. PICA cortical segmentに動脈瘤様所見(白矢印)を認めた(C)。頭頸部CTAで椎骨動脈は左鎖骨下動脈より遠位からの大動脈起始(黒矢頭: 左椎骨動脈起始部)であった(D)。

Fig. 2

脳血管撮影検査を行ったところLt. PICA cortical segmentに紡錘状脳動脈瘤を認めた(volume rendering 左:側面像, 右:正面像)。

Fig. 3

lateral medullary segmentからのPICAの造影(側面像)(A)。
telovelotonsillar segmentからのPICAの造影(側面像)(B)。SL-10を脳動脈瘤母血管に誘導し、13%NBCAを0.01cc投与した(C)。NBCAの遠位部へのmigrationや明らかな逆流は認めなかった(D)。

Fig. 4

術翌日頭部MRI 拡散強調画像横断像。Lt. PICA cortical segment領域に急性期脳梗塞(白矢印)を認める(A)。術翌日頭部TOF-MRA MIP正面像。Lt. PICA主幹部の描出は保たれている(B)。

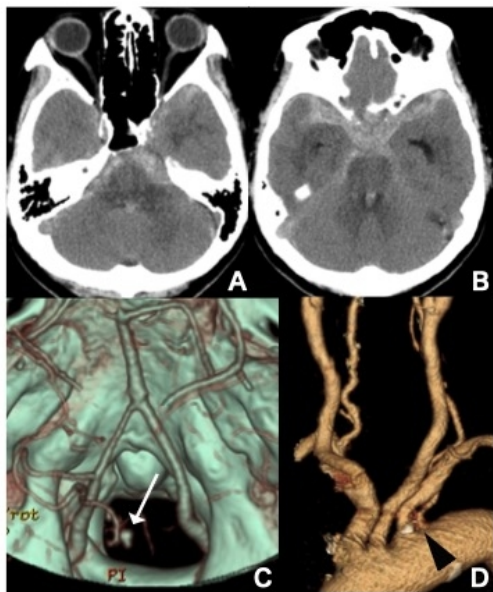


Fig.1

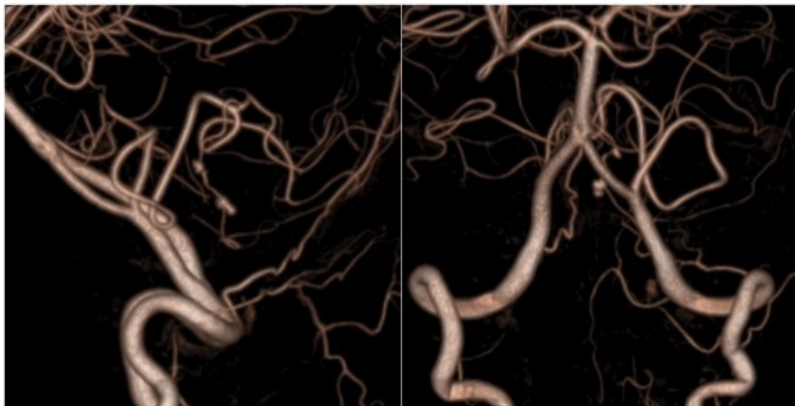


Fig.2

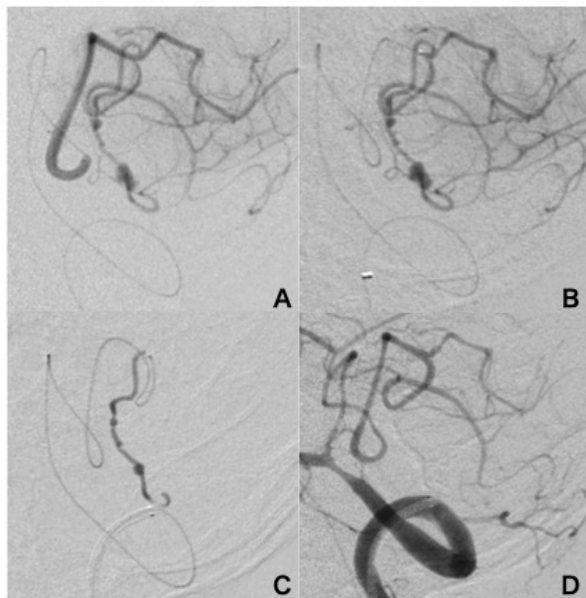


Fig.3

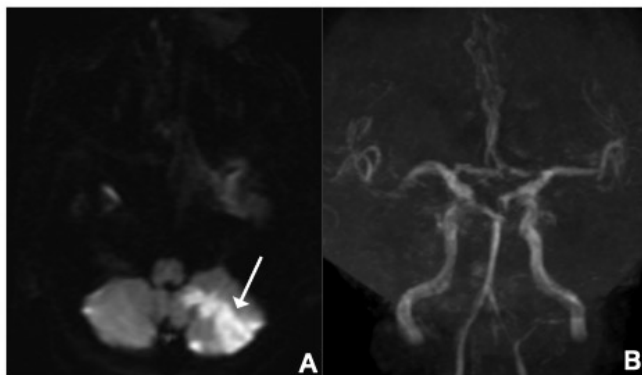


Fig.4