

- 1) 症例報告
- 2) 両側椎骨動脈閉塞に伴う前脊髄動脈瘤破裂によるくも膜下出血をきたした一例
- 3) 渡邊陽祐、武智昭彦、梶原佳則、三好浩之
- 4) 松山赤十字病院 脳神経外科
- 5) 〒790-8524 愛媛県松山市文京町1番地
Tel : 089-924-1111 Fax : 089-922-6892
Email : watanabeyosuke2001@yahoo.co.jp
- 6) Anterior spinal artery aneurysm, Subarachnoid hemorrhage, PICA-AICA anastomotic artery, VA rete mirabile
- 7) 「本論文を、日本脳神経血管内治療学会 機関紙 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いたします。

和文要旨

<目的> くも膜下出血精査にて両側椎骨動脈閉塞に伴うPICA-AICA anastomotic arteryに動脈瘤を認めコイル塞栓術を行なったが、術後の精査にて前脊髄動脈瘤破裂と判明した症例を報告する。

<症例> 78歳男性。頭痛及び右片麻痺をきたし当院救急受診、CTにて後頭蓋窩右側優位に広がるくも膜下出血を認めた。DSAを施行すると両側椎骨動脈閉塞および右PICA-AICA anastomotic arteryの起始部に3mm大の動脈瘤を認め、動脈瘤および母血管を塞栓した。術数時間後に呼吸停止をきたし、MRにて延髄から腰髄に至る出血あり、後方視的に検討すると前脊髄動脈瘤が描出されており出血源と判断した。

<結論> 両側椎骨動脈閉塞を伴うくも膜下出血では、hemodynamic stressにより形成された動脈瘤が出血源の可能性があり、PICA-AICA吻合などの頭蓋内側副路だけでなく、前脊髄動脈などの頭蓋外側副路に発生した動脈瘤も疑うことが重要である。

本文

緒言：

くも膜下出血の出血源が脊髄動脈瘤である症例は非常に稀とされる¹⁾。前脊髄動脈瘤は、脊髄動静脈奇形や大動脈縮窄などの血管奇形¹⁾、自己免疫疾患²⁾、結合組織病などの血管炎³⁾や感染⁴⁾などが合併することが多いとされているが、両側の椎骨動脈閉塞に伴い発生した前脊髄動脈瘤破裂の報告は数例認めるのみで

ある⁵⁻⁸⁾。

今回我々はくも膜下出血にて発症し、両側椎骨動脈本幹の閉塞及び右 PICA-AICA anastomotic artery に発生した動脈瘤を認めたため、同動脈瘤を出血源と判断しコイル塞栓術を行なったが、術後の精査にて前脊髄動脈瘤が出血源であると判断した症例を経験したので報告する。

症例呈示：

78 歳男性がカラオケ中に突然の頭痛、意識障害、右半身の脱力を発症し、当院を救急受診した。心筋梗塞、糖尿病、小脳梗塞の既往があり、バイアスピリン内服中であった。来院時意識 JCS3、MMT にて 4/5 の右片麻痺の状態、単純 CT にて後頭蓋窩右側優位のくも膜下出血を認めた (Fig. 1)。来院時にごく軽度の右片麻痺があり頭部 MRI を施行したが、くも膜下出血の他には麻痺の原因となる急性期所見は認めなかった (Fig. 1)。MRA では両側の頸部椎骨動脈は明瞭に描出されるものの、頭蓋内への連続性はなかった (Fig. 1)。

同日緊急にて DSA を施行した。右椎骨動脈撮影では椎骨動脈本幹は V4 で閉塞しており、閉塞部近傍の右 PICA 分岐部から AICA につながる血管及びその起始部に 3mm 大の動脈瘤を認めた (Fig. 2)。左椎骨動脈撮影では V4 より分岐した多数の網状の血管を介して末梢が描出された (Fig. 3)。CT、MRI で認めたくも膜下出血の局在と動脈瘤の場所が一致することから、この動脈瘤破裂によるくも膜下出血と判断し、血管内手術を行った。

右椎骨動脈に 5Fr Destination、左椎骨動脈に 4Fr 診断カテーテルを留置した。脳動脈瘤の近位部（右椎骨動脈 V4）を、Scepter XC を用いて母血管閉塞し、対側から撮影すると union を介して右椎骨動脈閉塞遠位まで描出され、右椎骨動脈は動脈瘤を含め母血管閉塞できると判断した。そこで、動脈瘤から椎骨動脈近位側に向かって順行性の flow がなくなるまで塞栓した（Target NANO 2.0mm * 3cm 4 本、3.0mm * 6cm、2.0mm * 4cm 2 本）。最終の右椎骨動脈撮影にて動脈瘤は描出されず、右 C2 radicular A を介した側副血行にて動脈瘤末梢の PICA から AICA につながる血管が描出されていた (Fig. 4)。

塞栓術後 4 時間は問題なかったが、突然に呼吸停止をきたした。緊急で施行した CT、MR にて頭蓋内くも膜下出血に変化はみられなかったが、頸髄を中心に髄内からくも膜下に広がる広範な血腫を認めた (Fig. 5)。DSA 画像を再確認したところ、親カテーテルを留置した際に行った右椎骨動脈撮影、及び右椎骨動脈をバルーンで閉塞して行った左椎骨動脈撮影にて、segmental artery を介して頭蓋内に流入する前脊髄動脈を認め、頸髄 C3 レベルで右後方に突出する 8mm 大の前脊髄動脈瘤が描出されていた (Fig. 6)。さらに来院時に緊急で施行した頸部 MRA を確認したところ、やはり同部位に動脈瘤を認めた (Fig. 1)。以上の経過よりくも膜下出血の原因は前脊髄動脈瘤の破裂であり、未破裂の椎骨動脈瘤塞栓後に前脊髄動脈瘤が再破裂をきたし、呼吸停止に至った判断した。神経学的に重症で、呼吸管理など保存的加療を行なったが改善なく、発症 4 日目に死亡した。

考察：

前脊髄動脈瘤破裂は非常に稀であり、脊髄動脈瘤の約半数が脊髄動静脈奇形、大動脈縮窄症などの血管病変を伴うとされている¹⁾。血管病変に伴い発生する場合、先天的な血管奇形への流入血管もしくは血管奇形に伴う側副血行路となった前脊髄動脈に、血行力学的ストレスがかかることにより動脈瘤が形成されると想定されている⁹⁾。血管病変を伴わない場合では、明らかな原因を認めない症例（孤発性）の他⁴⁾、自己免疫疾患²⁾、血管炎³⁾、感染⁴⁾などに合併して発生したものが報告されている。脳動脈瘤と比較し、血行力学的ストレスにより発生する動脈瘤が多いのが特徴である⁹⁾。

前脊髄動脈瘤の原因となりうる血管病変の内、椎骨動脈に生じた先天的な血管奇形に伴う前脊髄動脈瘤の報告は極めて稀で、Nagahata らの vertebral rete mirabile に伴う症例のみである⁵⁾。Nagahata らは両側に発生した vertebral rete の側副血行路となった前脊髄動脈に血行力学的に動脈瘤が発生、破裂したと報告しており、典型的でないくも膜下出血像に椎骨動脈異常を認める場合は、前脊髄動脈瘤を疑うことが重要と述べている。

本症例は脳血管撮影の所見から両側の椎骨動脈閉塞および右 PICA-AICA anastomotic artery、左 vertebral rete mirabile に合併した前脊髄動脈瘤破裂と診断した。PICA-AICA anastomotic artery は、胎生期の脳動脈吻合である PICA と AICA 吻合の遺残と考えられている¹⁰⁾。この吻合は Streeter の脳血管発生第 4 期に相当する胎生第 6-8 週頃に消失するとされ、発生頻度は不明ではあるが非常に稀とされる¹⁰⁾。一方 Vertebral rete mirabile とは椎骨動脈に発生

した rete であるが、内頸動脈の rete mirabile と異なり明確な定義はない。現在まで 10 数例の報告のみで、椎骨動脈の一部が rete 様に描出される^{5), 11), 12)}。発生機序は内頸動脈の rete mirabile 同様と考えられ、一旦形成された椎骨動脈が原始血管退縮後の胎生期もしくは周産期に退行し、これを代償するために発達するとされる¹³⁾。我々が渉猟した限りでは全例 Carotid rete mirabile と合併しており、椎骨動脈単独での報告はない。本症例の左椎骨動脈は形態的に多数の網状血管を介して末梢に連続しており rete mirabile と判断した。一方、動脈硬化性などにて両側椎骨動脈閉塞をきたし前脊髄動脈瘤を生じた報告は散見され、これまでに 3 例の報告がある⁶⁻⁸⁾。発生機序は側副血行の前脊髄動脈に血行力学的機序により生じたとされている。これらの報告でも両側の椎骨動脈閉塞に伴うくも膜下出血を認めた場合、椎骨動脈解離だけでなく前脊髄動脈瘤を疑うことが非常に重要としている。本症例は十分な精査を行っておらず椎骨動脈閉塞の機序や時期を明らかに出来ていないが、両側椎骨動脈本幹が閉塞をきたし、その側副血行として右 PICA-AICA anastomotic artery および左 vertebral rete mirabile が形成されたが、頭蓋内への血流が不十分であったため前脊髄動脈を介する側副血行が発達し、動脈瘤が形成されたと推察された。

前脊髄動脈瘤に対する治療法は、直達手術、血管内手術の他、保存的加療の報告も散見されるのが特徴である^{4), 6), 14), 15)}。Ashour らは両側椎骨動脈閉塞に合併した前脊髄動脈瘤破裂症例を報告し、側副血行に血行力学的に動脈瘤が形成された場合は、母血管の血流温存の観点から血管内治療よりも直達手術を推奨している⁶⁾。また、比較的小さく、neck を欠いた紡錐形の動脈瘤が多いと報告さ

れており⁴⁾、直達手術が望ましい症例も多いが、本症例の如く前脊髄動脈瘤は正中から前側方に突出することが多く、後方からのアプローチでは動脈瘤の視野が得にくいこともあり、母血管の温存ができるのであれば、血管内治療も治療の選択肢として十分考慮できる^{14),15)}。

今回、右 PICA-AICA anastomotic artery に脳動脈瘤の合併を認めた。同部位に発生した動脈瘤は非常に稀で、我々が渉猟した範囲では過去に 3 例のみで^{10),16),17)}、前脊髄動脈瘤との合併例はない。PICA-AICA anastomotic artery に発生した動脈瘤の破裂例は 1 例のみで、Fujimura らは側副血行である PICA-AICA anastomotic artery に血行力学的機序に伴い動脈瘤が形成・破裂したと考察している¹⁷⁾。本症例は発症時に軽度の右片麻痺を認めたこと、MRI にて頭蓋内に明らかな原因病巣を認めなかったこと、両側椎骨動脈の走行異常を認めたことより、脊髄動脈に発生した動脈瘤も疑い精査を進めるべきであった。脊髄のさらなる精査を行っておれば右 PICA-AICA anastomotic artery に発生した動脈瘤は未破裂であると判断できた可能性がある。

結語：

両側椎骨動脈閉塞に伴うくも膜下出血では、hemodynamic stress により形成された動脈瘤が出血源の可能性があり、PICA-AICA 吻合などの頭蓋内側副路だけでなく、前脊髄動脈などの頭蓋外側副路に発生した動脈瘤も疑って出血源検索をすることが重要である。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

文献

1. Rengachary SS, Duke DA, Tsai FY, et al. Spinal Arterial Aneurysm: Case Report. *Neurosurgery* 1993; 33: 125–130.
2. Klingler JH, Glinge S, Shah MJ, et al. Rupture of a spinal artery aneurysm attributable to exacerbated Sj, Sha syndrome: case report. *Neurosurgery* 2009; 64: E1010–1011.
3. Smith G, Hoh BL, Albayram MS. Anterior spinal artery aneurysm presenting with spinal subarachnoid hemorrhage in a case of polyarteritis nodosa. *Clin Imaging* 2019; 56: 108–113.
4. Berlis A, Scheufler KM, Schmahl C, et al. Solitary Spinal Artery Aneurysms as a Rare Source of Spinal Subarachnoid Hemorrhage: Potential Etiology and Treatment Strategy. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2005; 26: 405–410.
5. Nagahata M, Kondo R, Mouri W, et al. Bilateral carotid and vertebral rete mirabile presenting with subarachnoid hemorrhage caused by the rupture of spinal artery aneurysm. *Tohoku J Exp Med*. 2013; 230: 205–209.
6. Ashour R, Filippidis A, Patel N. Ruptured Anterior Spinal Artery Aneurysm Associated with Bilateral Vertebral Artery Occlusion Treated by Surgical Clipping. *World Neurosurg*. 2015; 84: 1178. e11–13.
7. Kawamura S, Yoshida T, Nonoyama Y, et al. Ruptured anterior spinal artery aneurysm: a case report. *Surg Neurol*. 1999; 51: 608–612.
8. Kitayama M, Nishioka K, Okawa T, et al. Subarachnoid Hemorrhage due to Rupture of an Anterior Spinal Artery Aneurysm: A Case Report. *Spinal Surgery* 2009; 23: 91–94.
9. Yoshida M, Ichihara K, Nakabayashi K, et al. A Case of Subarachnoid Hemorrhage Due to Intracranial Anterior Spinal Artery Aneurysm. *Surg Cereb Stroke* 2012; 40: 135–139.
10. Koga H, Abe M, Tabuchi K. Cerebellopontine angle lipoma with vascular anomaly: a case report. *No Shinkei Geka*. 1994; 22: 1057–1061.
11. Mondel PK, Saraf R, Limaye US. Rete mirabile associated with pial arteriovenous fistula: imaging features with literature review. *BMJ Case Rep*. 2017; 16; doi:10.1136/bcr-2016-012939
12. Lee SY, Cha SH. Bilateral carotid and vertebral rete mirabile presenting with a prominent anterior spinal artery mimicking a spinal dural AV fistula at MRI. *Korean J Radiol*. 2011; 12:740–744.

13. Baek JH, Kim BM. Stenting for symptomatic vertebral artery stenosis associated with bilateral carotid rete mirabile: the long-term clinical and angiographic outcome. *Korean J Radiol.* 2015; 16: 678–681.
14. Walz DM, Woldenberg RF, Setton A. Pseudoaneurysm of the anterior spinal artery in a patient with Moyamoya: an unusual cause of subarachnoid hemorrhage. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2006; 27: 1576–1578.
15. Lavoie P, Raymond J, Roy D, et al. Selective treatment of an anterior spinal artery aneurysm with endosaccular coil therapy. Case report. *J Neurosurg Spine.* 2007; 6: 460–464.
16. JANE JA. A large aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery in a 1-year-old child. *J Neurosurg. eurosurg. large ane*
17. Fujimura G, Hirohata M, et al. Bilateral anomalous posterior inferior cerebellar arteries in a 1-year-old child. *J Neurosurg.* 2003; 98: 460–464.

図表の説明

Fig. 1

A: CT revealed subarachnoid hemorrhage, mainly in the posterior fossa.

B, C, D: Cervical MRA (B) and brain MRA (C, anterior view; D, lateral view) showed occlusion bilateral vertebral artery and collateral flow signal via anterior spinal artery (arrowhead).

Fig. 2

Rt. vertebral angiography (A, anterior view; B, lateral view; C, D, 3D-DSA) showed rt. VA terminated at the origin of the PICA and anastomoses of the PICA–AICA were present (arrowhead), as well as a saccular 3mm-sized aneurysm with bleb originating from the PICA–AICA anastomosis (arrow).

Fig. 3

Lt. vertebral angiography (A, anterior view; B, lateral view; C, 3D-DSA) showed Lt. VA was occluded V3 segment and tortuous arterial network filling into the distal VA (arrowhead).

Fig. 4

Rt. VA parent artery occlusion including aneurysm was performed (A, working angle). Antegrade collateral circulation via radicular artery (arrow) and retrograde collateral circulation from the Lt. VA (B, anterior view) were observed.

Fig. 5

Head CT (A) showed no change in subarachnoid hemorrhage, but cervical MR (B, T1 weighted image; C, T2 weighted image) showed bleeding from the spinal cord into subarachnoid space.

Fig. 6

Retrospective analysis revealed rt. vertebral angiography (A, anterior view; B, lateral view; C, rt. front oblique) and Lt. vertebral angiography (D, anterior view) demonstrated an ASA aneurysm at the level of C3 (arrow).



Fig.1

A B
C D

254x169mm (72 x 72 DPI)

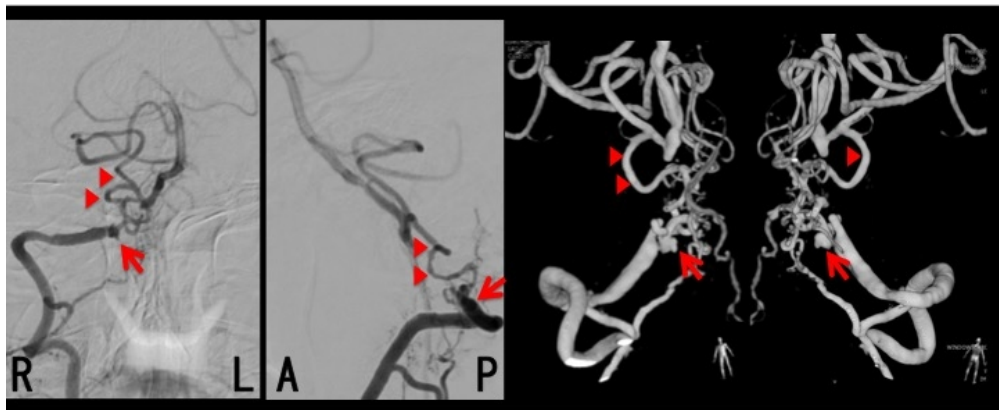


Fig.2

A B C D

254x169mm (72 x 72 DPI)

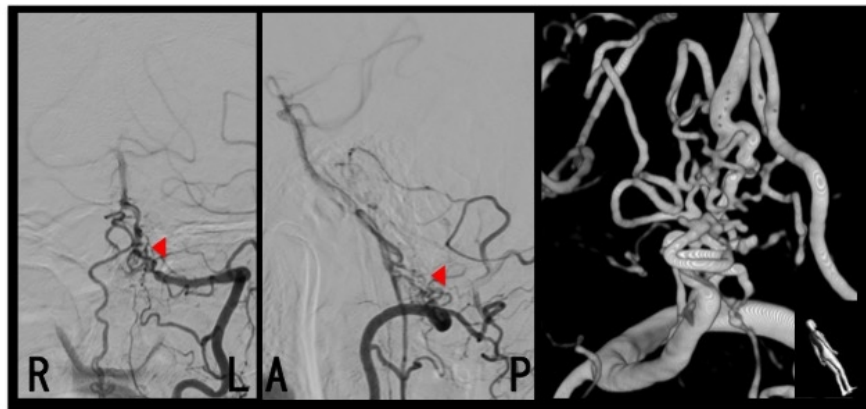


Fig.3

A B C

254x169mm (72 x 72 DPI)

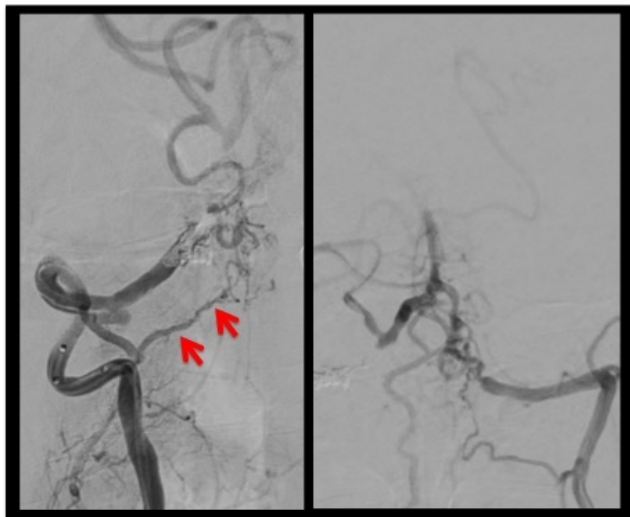


Fig.4
A B

254x169mm (72 x 72 DPI)

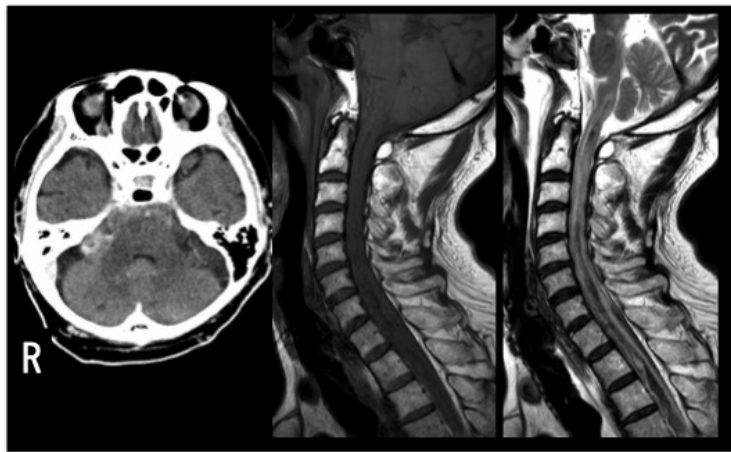


Fig.5
A B C

254x169mm (72 x 72 DPI)

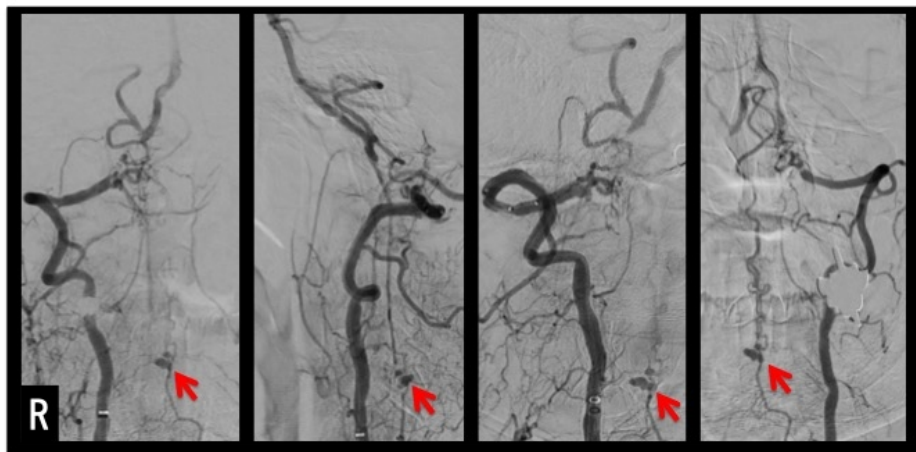


Fig. 6
A B C D

254x169mm (72 x 72 DPI)