症例報告

脳室内出血で発症した A1 穿通枝遠位部動脈瘤の 1 例

萩原 靖 二宮 貢士 水島 靖明
上野 正人 松岡 哲也 吉峰 俊樹*

Distal A1 Perforating Artery Aneurysm presenting with Intraventricular Hemorrhage : A Case Report
by

Yasushi Hagihara, M.D., Koushi Ninomiya, M.D., Yasuaki Mizushima, M.D.,
Masato Ueno, M.D., Tetsuya Matsuoka, M.D., and Toshiki Yoshimine, M.D.*

from

Senshu Critical Care Medical Center

*Department of Neurosurgery, Osaka University Graduate School of Medicine

A case of intraventricular hemorrhage caused by an A1 perforating artery aneurysm was reported. A fifty-five year-old female without any hereditary background or infections had collapsed at work, become comatose, and was transferred to our hospital. Computed tomography showed a massive intraventricular hematoma, and subsequent angiography revealed an aneurysm arising from an A1 perforating artery at the right lateral ventricular wall. The aneurysm was successfully removed by a transcortical-transventricular approach, and the patient regained consciousness after two weeks. To the best of our knowledge, this is the first report of an intraventricular aneurysm arising from an A1 perforating artery.

(Received November 16, 2005 ; accepted February 6, 2006)

Key words : Charcot-Bouchard aneurysm, intraventricular hemorrhage, perforating artery, aneurysm
Jpn J Neurosurg (Tokyo) 15 : 463-467, 2006

はじめに

現在まで報告されている脳室内動脈瘤の多くは、もやもや病や動静脈奇形 (arteriovenous malformation ; AVM) など先天性血管異常に関係したものであり¹⁾³⁾⁵⁾⁸⁾¹⁰⁾、その大部分が前脈絡叢動脈 (anterior choroidal artery ; AchA)、後脈絡叢動脈 (posterior choroidal artery ; PchA) 末梢部に認められる⁶⁾⁷⁾¹¹⁾。われわれは、これらの先天異常なく、脳室内出血 (intraventricular hematoma ; IVH) で発症し、血管造影、MRI にて前大脳動脈 A1 部穿通枝末梢部動脈瘤が証明された稀な 1 例を経験し、手術により動脈瘤を摘出し、良好に治療しえたので報告する。

症 例

患 者 : 55 歳, 女性

既往歴 : 特記すべき既往歴なし

現病歴 : 仕事中に後頸部痛と嘔気を訴え、その直後より意識障害をきたした。救急隊到着時には、意識レベルは JCS (Japan Coma Scale) -20, GCS (Glasgow Coma Scale) 12 点 (E3 V3 M6) であったが、当救命救急センター到着時には、7 点 (E1 V1 M5) まで低下していた。

検査所見 : 瞳孔は左右同大 3.0 mm, 対光反射正常, 眼位の異常は認められなかった。呼吸数 16/min, 血圧 166/100 mmHg, 脈拍 78/min であった。頭部 CT にて右側脳

大阪府立泉州救命救急センター / 〒598-0048 泉佐野市りんくう往来北 2-24 (連絡先: 萩原 靖)

Address reprint requests to: Yasushi Hagihara, M.D., Senshu Critical Care Medical Center, 2-24 Rinku-Ohrui kita, Izumisano-shi, Osaka 598-0048, Japan

*大阪大学大学院医学系研究科脳神経外科学講座

Fig. 1 Computed tomography at admission

A, B: A plain CT revealed the massive intraventricular hemorrhage.

C: CT angiography showed the unidentified mass at the wall of right anterior horn of the lateral ventricle.

D, E, F: A MRI revealed the low intensity mass at the wall of anterior horn of the lateral ventricle.

室優位の IVH を認めたが (Fig. 1A), 脳実質内に明らかな病変は認められなかった。同時に行われた CT 血管造影では、明らかな脳血管異常は認められなかったが、脳室壁に異常な小陰影を認めた (Fig. 1B)。血液検査では、RBC 379×10^4 , Hb 12.3%, Ht 37.2%, WBC 4,900, Plt 26.3×10^4 , PT 11.0 sec, APTT 25.7 sec, fibrinogen 330 mg/dl, FDP-DD 630 ng/ml, AT-III 121.5%, その他生化学検査値に異常はなく、感染徴候も認められなかった。

臨床経過: 進行する意識障害と脳室内血腫から急性水頭症を疑い、脳圧コントロールおよび脳圧モニターのため、左前角穿刺による脳室ドレナージを施行した。初圧約 15 cmH₂O, その後 12 cmH₂O で設定したが、100 ml/day 程度の脳脊髄液 (cerebrospinal fluid; CSF) 流出であった。

出血源検索のため第 2 病日に脳血管造影を施行したところ、右内頸動脈撮影で、前大脳動脈 A1 部からの穿通枝末梢部に動脈瘤と思われる直径約 3 mm の球状陰影を認めた (Fig. 2)。外科的治療を想定し、動脈瘤の位置を明確に把握するために MRI を施行したところ、右側脳室内、モンロー孔直上の位置に 5 mm 大の mass lesion を

確認した。

右側脳室内動脈瘤による IVH と診断し、第 3 病日に transcortical-transventricular approach による動脈瘤摘出術を施行した。動脈瘤は、モンロー孔直上の脳室壁に付着する直径 6 mm の拍動性の球状瘤で、比較的厚い壁を有していた。脳室内底部から脳室壁に沿って走る穿通枝が直接動脈瘤に流入しており、周囲の脳室壁には出血による破壊などの変化は認められなかった。動脈瘤を脳室壁から剥離し、親血管を焼灼、切離して瘤を摘出した (Fig. 3)。その後、IVH を可及的に吸引、除去して手術を終了した。術後経過は良好で、第 12 病日には、意識レベルは GCS15 点 (E4 V5 M6)、明らかな麻痺は認められず、軽度記憶障害を残すのみであった。高血圧については、入院後も一貫して認められなかった。術後血管造影検査にて動脈瘤陰影の消失を確認し、第 26 病日にリハビリテーションのため他院へ転院した。

考 察

クモ膜下出血 (subarachnoid hemorrhage; SAH) や脳

Fig. 2

- A:** Right internal carotid angiography revealed the aneurysm emerging from an arteriole classified as one of the proximal group of A1 perforating arteries.
B: The aneurysm was confirmed to be excised by the post-operative angiography.

Fig. 3 Appearance of aneurysm

- A:** Outside view of aneurysm. Partial thinning of the wall recognized.
B: Cross section of aneurysm. Aneurysm had thick wall (white arrowheads) and was partially thrombosed (black arrowheads).

内出血 (intracerebral hematoma; ICH) を伴わない IVH の多くは、原因として、もやもや病、AVM、海綿状血管腫など何らかの先天奇形や、稀に脳腫瘍などを基礎疾患として持ち¹⁾⁷⁾⁹⁾¹¹⁾、本症例のような正常人に発生することは稀である。Miyake らの報告⁴⁾によれば、脳室内動脈瘤の報告 24 例中、本例のような idiopathic なものは 6 例のみで、大半がもやもや病、AVM に関係するものであった。脳室内穿通枝動脈瘤として最も報告が多いのは、AchA、PchA を親血管とするものであり、A1 穿通枝の動脈瘤は、われわれが検索しえた限り例がなく、きわめて稀な症例と考えられた。A1 穿通枝群は proximal group と lateral group に分類され、proximal group は比較的太く、尾状核頭、被殻、内包とともに透明中隔など脳室壁を灌

流すると考えられるため、本症例の原因血管と合致する。今回われわれが経験した症例は、先天性血管異常や高血圧症が認められず、A1 穿通枝 proximal group から発生したと考えられる脳室内動脈瘤であり、術中所見でもその存在が確かめられたことは興味深い。

治療については、保存的治療、外科的治療による摘出などの選択肢が考えられる。もやもや病に関係する脳室内動脈瘤は、病理学的に pseudoaneurysm であるとする報告が圧倒的に多く、経時的な脳血管造影で消失しないもののみを外科的な治療対象とするものが多い^{4)6)8)10)~12)}。しかしながら、idiopathic aneurysm や AVM に関連する動脈瘤は、病理学的に true aneurysm とするものが大半であり、われわれが獵歩した文献中の 14 例の報告では、

病理学的な所見が明らかな 11 例中 9 例が true aneurysm であった²⁾⁴⁾⁶⁾¹⁰⁾¹¹⁾。今回の症例に関しては、病理学的証明ができていないものの、術中所見および標本の肉眼所見から true aneurysm であると考えられた。

また、これら 14 例の動脈瘤のうち、12 例が外科的治療を受け、8 例が good recovery、2 例が fair と判定されている。保存的に治療を受けた 2 例はいずれも死亡しており、true aneurysm と思われる脳室内動脈瘤については、まず外科的治療が第一選択であろうと思われる。

本症例については、進行する意識障害と脳室内出血の所見から急性水頭症を否定できず、緊急脳室ドレナージを先行して行い、その後出血源の検索を行った。あえて左前角穿刺を行ったのは、初回の頭部 CT で右側脳室血腫内に異常陰影を疑ったからである。脳室内動脈瘤や血管異常の潜在している可能性のある場合、2 次的な出血を予防する意味でも、脳室ドレナージ穿刺の部位や方法については慎重に決定すべきであろう。

脳室内動脈瘤の外科的動脈瘤切除では、血管造影や CT の情報のみでは、瘤の位置やアプローチの方法の決定はしばしば困難である。Neuronavigation などの手術支援が利用できれば理想的ではあるが、本症例においては MRI による術前検討が非常に有用であった。

近年、MRA の普及とともに、脳出血に関しては急性期の MRA による診断が行われることも多くなっているが、脳室内出血に関しては MRI の所見に注意したうえでの conventional angiography を含めた、十分な出血源精査が必要であると考えられた。

おわりに

特別な基礎疾患なく、突然の脳室内出血で発症した A1 穿通枝遠位部動脈瘤の 1 例を報告した。病理学的証明はなされていないものの、外科的切除による動脈瘤の所見から、真性動脈瘤と考えられたきわめて稀な症例であった。

文 献

- 1) Kawai K, Narita K, Nakayama H, Tamura A: Ventricular hemorrhage at an early stage of Moyamoya disease: Case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **37**: 184-187, 1997.
- 2) Knuckey NW, Epstein MH, Haas R, Sparadeo F: Distal anterior choroidal artery aneurysm: Intraoperative localization and treatment. *Neurosurgery* **22**: 1084-1087, 1988.
- 3) Matsumoto K, Akagi K, Abekura M, Ohkawa M, Tasaki O, Oshino S: Cerebral aneurysm associated with an anomalous hyperplastic anterior choroidal artery. *Acta Neurochir (Wien)* **142**: 347-350, 2000.
- 4) Miyake H, Ohta T, Kajimoto Y, Ogawa R, Deguchi J: Intraventricular aneurysms. Three case reports. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **40**: 55-60, 2000.
- 5) 中井啓文, 山本和秀, 佐古和廣, 谷川緑野, 國本雅之, 橋本政明, 苦米地正之, 大神正一郎, 米増祐吉, 村岡俊二: 前脈絡動脈の“側副血行路動脈瘤”を合併したモヤモヤ病の 1 例. *No Shinkei Geka* **20**: 958-990, 1992.
- 6) Nishihara J, Kumon Y, Matsuo Y, Sakaki S: A case of distal anterior choroidal artery aneurysm: Case report and review of the literature. *Neurosurgery* **32**: 834-837, 1993.
- 7) Papo I, Salvolini U, Garuselli G: Aneurysm of the anterior choroidal artery with intraventricular hematoma and hydrocephalus. Case report. *J Neurosurg* **39**: 255-260, 1973.
- 8) 杉浦康仁, 松澤裕次: モヤモヤ病に合併した末梢動脈瘤に対し platinum coil を用いて血管内治療を行った 1 例. *No Shinkei Geka* **26**: 73-77, 1998.
- 9) Vates GE, Arthur KA, Ojemann SG, Williams F, Lawton MT: A neurocytoma and associated lenticulostriate artery aneurysm presenting with intraventricular hemorrhage: Case report. *Neurosurgery* **49**: 721-725, 2001.
- 10) Yanaka K, Tsuboi K, Fujita K, Aoki K, Takeuchi S, Anno I, Nose T: Distal anterior choroidal artery aneurysm associated with an arteriovenous malformation. Intraoperative localization and treatment. *Surg Neurol* **53**: 546-551, 2000.
- 11) Yoneoka Y, Ezuka I, Takai N, Oda T, Tamura T, Yamashita S: Ruptured distal anterior choroidal artery aneurysm presenting with casting intraventricular hemorrhage. *Acta Neurochir (Wien)* **140**: 185-189, 1998.
- 12) Yuasa H, Tokito S, Izumi K, Hirabayashi K: Cerebrovascular moyamoya disease associated with an intracranial pseudoaneurysm. Case report. *J Neurosurg* **56**: 131-134, 1982.

要 旨

脳室内出血で発症した A1 穿通枝遠位部動脈瘤の 1 例

萩原 靖 二宮 貢士 水島 靖明
上野 正人 松岡 哲也 吉峰 俊樹

基礎疾患なく突然の脳室内出血にて発症し、右側脳室内動脈瘤が認められた 55 歳女性の症例を報告した。動脈瘤は、前大脳動脈 A1 穿通枝内側群より発生し、モンロー孔直上の脳室壁に存在したが、直達手術により摘出し、良好に治療しえた。A1 穿通枝を親血管とする脳室内動脈瘤は過去に報告例がなく、きわめて稀な症例と考えられた。

脳外誌 15 : 463-467, 2006