短期間で増大，瘤内血栓化および再開通を認めた小型未破裂脳動脈瘤の1例

萩田 大地¹⁾，山城 重雄¹⁾，加治 正知¹⁾，牟田 大助¹⁾，竹崎 達也¹⁾，賀来 泰之¹⁾，
竹島 裕貴¹⁾，鈴木 悠平¹⁾，後藤 智明¹⁾，山本 東明¹⁾，西 徹²⁾

1) 済生会熊本病院脳卒中センター脳神経外科，2) 桜十字病院脳神経外科

A Case of a Small Unruptured Aneurysm that enlarged, thrombosed and recanalized over a Short Time

Daichi Hagita, M.D.¹⁾, Shigeo Yamashiro, M.D.¹⁾, Masatomo Kaji, M.D.¹⁾, Daisuke Muta, M.D.¹⁾,
Tatsuya Takezaki, M.D.¹⁾, Yasuyuki Kaku, M.D.¹⁾, Yuki Takeshima, M.D.¹⁾, Yuhei Suzuki, M.D.¹⁾,
Tomoaki Goto, M.D.¹⁾, Haruaki Yamamoto, M.D.¹⁾, and Toru Nishi, M.D.²⁾

1) Division of Neurosurgery, Department of Cerebrovascular Medicine & Surgery, Saiseikai Kumamoto Hospital, 2) Department of Neurosurgery, Sakurajuku Hospital

We report a case of a small aneurysm arising from the anterior communicating artery (ACOM) that rapidly enlarged with repeated thrombosis and recanalization over a short time. A 64-year-old woman presented with a minor headache. Magnetic resonance imaging (MRI) showed a 3 mm diameter aneurysm arising from the ACOM, and there was stenosis of the end of the left internal carotid artery and the moyamoya arteries in the left hemisphere. The aneurysm was not visualized by contrast-enhanced three-dimensional (3D) computed tomography angiography (CTA) after 20 days; however, conventional angiography showed the neck of the aneurysm on day 21. The disappearance and recanalization of the aneurysm neck was confirmed on repeated examination. Since there was a high risk of aneurysm rupture, microsurgical clipping of the aneurysm neck was performed on day 36. Intraoperative examination of the aneurysm revealed a thin wall, with the majority of dome thrombosed. Immediate treatment should be recommended for an aneurysm that shows thrombosis, recanalization and enlargement over a short time because of a high risk of rupture. In addition, we speculate that unilateral moyamoya disease is partially associated with the occurrence and growth of the aneurysm.

(Received April 4, 2018; accepted May 29, 2018)

Key words : anterior communicating artery aneurysm, unruptured aneurysm, thrombosis, recanalization, unilateral moyamoya disease

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 27 : 852-857, 2018

緒言

脳動脈瘤の瘤内血栓化は，大型および巨大動脈瘤で頻度が高く，巨大動脈瘤では約50%にみられると報告される²⁾¹²⁾¹³⁾．しかし，小型動脈瘤においては比較的まれな

現象であり，さらに急速増大の過程で血栓化および再開通を伴う未破裂脳動脈瘤は例をみない．

今回われわれは，片側もやや病に合併し，約1カ月の経過で急速増大，瘤内血栓化および再開通を繰り返した小型未破裂前交通動脈瘤の1例を経験したので，文献

連絡先：萩田大地，〒861-4193 熊本市南区近見5-3-1 済生会熊本病院脳神経外科

Address reprint requests to : Daichi Hagita, M.D., Division of Neurosurgery, Department of Cerebrovascular Medicine & Surgery, Saiseikai Kumamoto Hospital, 5-3-1 Chikami, Minami-ku, Kumamoto-shi, Kumamoto 861-4193, Japan

的考察を加え報告する。

症例提示

患者：64歳，女性。

主訴：頭痛

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2016年某日（Day 1），軽い頭痛を主訴に近医を受診し頭部MRI（Fig. 1）を撮影したところ，長径3 mm大の前交通動脈瘤を指摘された。同時に，左内頸動脈終末部の狭小化と左前大脳動脈A1部の欠損，左中大脳動脈末梢の描出不良，左内頸動脈から分岐する多数のモヤモヤ血管を認めた。モヤモヤ病を疑われ，精査加療目的に他院へ紹介となったが，紹介受診時（Day 21）に撮影したMRI（Fig. 1）では，前交通動脈部の動脈瘤は消失していた。しかし元画像では，Day 1に撮影されたMRIと同部位に低信号を呈する動脈瘤を認め，内部の血栓化が疑われた。元画像における動脈瘤のサイズは7 mmと増大を認めた。再評価のため，その翌日（Day 22）に3DCTA（Fig. 1）を撮影すると，同動脈瘤は造影剤にて明瞭に描出された。早期の加療が必要と考えられ，当院へ紹介となった。

来院時現症：意識清明，神経学的異常所見なし。頭部全体に軽度の頭痛の訴えあり。

神経放射線学的所見：当院における3DCTA（Fig. 1）では，動脈瘤は再度消失しており，翌日（Day 26）の脳血管造影（Fig. 2A, B）においては，ネック周囲がわずかに描出されるのみであった。しばらく経過を観察した後，Day 35に再度3DCTA（Fig. 1）を行ったところ，動脈瘤はネック部分に加え，ドームの一部が再描出され，長径は9 mmへ増大していた。また，Day 26に施行した脳血管造影（Fig. 2C, D）では，左内頸動脈終末部の狭窄と発達したモヤモヤ血管がみられ，左前大脳動脈の陰影欠損，左中大脳動脈末梢の描出不良を認めた。脳血流シンチグラフィでは，いずれの領域においても，左右の血流に有意差を認めなかった。

以上の結果から，約1カ月の経過で2度の血栓化と再開通を認め，さらに短期間に増大する前交通動脈部未破裂脳動脈瘤と診断し，破裂リスクが高いと判断して，動脈瘤発見からDay 36に開頭クリッピング術を行った。

手術所見：右pterional transsylvian approachにて動脈瘤に接近した。右視神経の内側に動脈瘤を認め，ドームは内部の黒色の血栓が透見できるほど壁が薄く，ネック周囲は赤色を呈し，血流を有していた。右A1遮断下で，

対側A2の血流を確認しながらtentative parallel clipping¹⁰⁾の手法を用いてチタンクリップ1本でクリッピングを完遂した（Fig. 3）。

術後経過：術翌日の頭部CTで両側前大脳動脈領域に虚血巣を認め，術後25日には出血性梗塞の所見を呈したが，症状は右上下肢の軽い脱力のみで，1週間後には神経症状の残存なく自宅退院となった（Fig. 4）。

考 察

本症例は，くも膜下出血発症前の小型血栓化動脈瘤と捉えることができ，瘤内血栓化，再開通および急速増大を認めるも，未破裂の状態で開催クリッピング術まで施行し得た，非常に貴重な1例である。

脳動脈瘤の血栓化は全脳動脈瘤の9～13%に認め⁵⁾¹⁶⁾，大型の脳動脈瘤で頻度が高く，巨大脳動脈瘤では約半数の頻度で血栓化をきたすといわれている²⁾¹³⁾。その発症様式は，33～44%がくも膜下出血，5～8%が虚血による症状と報告されており¹²⁾，加納ら⁶⁾によれば，隣接する脳神経や脳実質に対するmass effectによるものが60%と最多で，予後はきわめて不良とされる。一方で，小型の動脈瘤の血栓化に関する報告は少ない。佐々木ら¹⁵⁾は血栓化と再開通を認めた破裂小型脳動脈瘤の11症例をまとめており，その部位，サイズ，消失から再描出までの時間に関して考察しているが，発症様式はいずれもくも膜下出血であり，未破裂脳動脈瘤は含まれていない。

くも膜下出血をきたしていなくても，急性発症の激しい頭痛や嘔吐が主訴となった症例の報告も存在する¹²⁾¹⁸⁾¹⁹⁾。その病態として，永田ら⁹⁾は瘤内血栓化や壁内出血に伴う動脈瘤の急激な増大が周囲組織を伸展させ，頭痛を引き起こしたと考察している。瘤内血栓化や壁内出血に伴う動脈瘤では，単純CTにおける瘤壁の高吸収像や，3DCTAや脳血管造影における瘤壁の増強効果を認めるが⁸⁾，本症例では認めなかった。初発症状は軽い頭痛であったが，急性発症ではなかった。以上より，本症例においては当初の頭痛と瘤内血栓化の関連性は薄く，無症候性の未破裂脳動脈瘤と推察する。

小型であるにもかかわらず瘤内血栓化を生じた機序に関しては，前述の佐々木ら¹⁵⁾によれば，くも膜下血腫による周囲からの圧迫や，治療による低血圧，頭蓋内圧亢進による灌流低下などを挙げているが，本症例は未破裂であり当てはまる機序は渉猟し得なかった。

本症例の動脈瘤発生の要因として，第一に片側モヤモヤ病の関与が考えられる。モヤモヤ病の脳動脈瘤合併率は5～15%といわれ³⁾，発生部位は脳底部の異常血管網

Fig. 1 The progression of an unruptured ACOM aneurysm that enlarged, thrombosed and recanalized over 35 days (A–C and G–I are lateral views of the 3D images ; D–F, J and K are the original axial images).

A, D : Initial MRI on day 1 showing a 3 mm diameter aneurysm arising from the ACOM.

B, E : MRI on day 21 showing that the aneurysm disappeared and seemed to be thrombosed in the original image.

C, F : CTA on day 22 demonstrating the reappearance of the aneurysm. The diameter was 7 mm in the original image.

G, J : CTA on day 25 showing that the aneurysm disappeared again.

H : Conventional angiograms on day 26 showing the neck of the aneurysm again but little of the aneurysm dome.

I, K : CTA on the day before treatment and on day 35 showing the neck and part of the aneurysm dome.

Fig. 2 Cerebral angiography performed on day 26. Right internal carotid angiograms (A, B) show the neck but not the dome of the ACOM aneurysm. Left internal carotid angiograms (C, D) show stenosis of the end of the left internal carotid artery and the moyamoya arteries in the left hemisphere.

あるいは側副血行をなす動脈に発生するものを除けば、両側もやや病では椎骨脳底動脈系に多く、片側もやや病では前交通動脈瘤に多いと指摘されている¹⁾⁷⁾。その機序として、両側もやや病では血行動態が椎骨脳底動脈優位となり、脳底動脈終末部に加わる圧が大きくなるためであり、この場合は前方循環に脳動脈瘤を合併する可能性はきわめてまれとされる¹⁴⁾。一方、片側もやや病では、病側の内頸動脈および前大脳動脈 A1 部の血流が低下し、同側の前大脳動脈 A2 部以降は健側の前大脳動脈 A1 部から前交通動脈を介して灌流されるため、前交通動脈への負荷が加わり動脈瘤が発生しやすいと考えられている¹⁴⁾。もやもや病の成人発症のピークは 30～40 歳であり¹¹⁾、本症例のように 64 歳で血行動態の急激な変化をきたし得るかどうかは不明だが、動脈瘤の発生および増大に寄与した可能性は否定できない。

また動脈瘤発生の第二の要因として、脳動脈解離による可能性も考えられる。初発症状の頭痛の原因が血管解離による動脈瘤発生時の症状と考え、急速に増大し、複数回の画像検査で形状変化を認めた点では、解離性脳動

脈瘤として矛盾しない。しかし術中所見では、動脈瘤はネックとドームを有する嚢状動脈瘤であり、前大脳動脈 A1 部～A2 部にかけての血管壁異常も認めなかった。前交通動脈のみに血管解離が生じたとは考えにくい。前述のような経過からは鑑別のひとつとして考慮すべきである。

血栓化脳動脈瘤の治療方法と介入時期に関しては検討の余地がある。大型の動脈瘤の場合の治療戦略としては、①通常のネッククリッピング、②バイパスや血栓除去を行ってのクリッピング/トラッピング、③バイパス＋近位親動脈閉塞、④バイパス＋遠位血管閉塞が考慮される⁴⁾¹⁷⁾。③および④は flow alteration と呼ばれる手法である。本症例は pterional approach で到達可能な小型の前交通動脈瘤であり、治療法は direct clipping が適切と考えた。ただし、術後両側前大脳動脈末梢領域に生じた脳梗塞の原因は、動脈瘤内部に存在していた血栓が、クリップ操作により破壊され末梢へ飛散した可能性が考えられる。術中所見 (Fig. 3) では、暗赤色血栓はドームのみ存在し、ネック付近は赤色であったため、血栓はな

Fig. 3 The surgical view from a right pterional approach (A). The dome of the aneurysm is on the medial side of the right optic nerve. The aneurysm has a thin wall so it is possible to see the thrombus inside (B). A straight clip was applied on the neck of the aneurysm (C).

Fig. 4 CT images on postoperative days 1 (A), 6 (B) and 25 (C) that show hemorrhagic infarction in the right hemisphere and the peripheral flow region of the left anterior cerebral artery.

いと判断した。しかし、クリップ操作による血流変化で内部の血栓が瘤外へ逸脱した可能性は否定できない。本症例のような合併症を予防するには、片側ではなく両側前大脳動脈 A1 部をテンポラリークリップにて遮断のうえ、クリップをアプラインするか、瘤内血栓除去を併用す

る必要があったと考察する。

また、治療介入時期に関して、Day 25 に撮影された 3DCTA でネックの描出がなく、血栓化治癒の可能性も考慮した結果直達手術は控えた。ところが、その翌日 Day 26 の脳血管造影ではネック部分のわずかな描出を

認めており、短期間での血栓化および再開通をきたす動脈瘤の破裂リスクを考慮すれば、この段階での治療介入が適切であったかもしれない。最終的に根治術は Day 36 に行ったが、この間にも膜下出血を起こさなかったのは幸運であったといえる。未破裂で血栓化が疑われる小型脳動脈瘤を認めた際は、破裂リスクを正確に評価し、早期の治療介入を考慮すべきである。

著者全員は日本脳神経外科学会への COI 自己申告の登録を完了しています。

本論文に関して開示すべき COI はありません。

文 献

- 1) 安藤 隆, 岩井知彦, 清水言行, 三輪嘉明, 出口一樹, 坂井 昇, 山田 弘, 大熊最夫, 船越 孝: モヤモヤ病に合併した脳動脈瘤—自験 6 例の検討—. 脳卒中の外科 **16**: 161-167, 1988.
- 2) Drake CG: Giant intracranial aneurysms: experience with surgical treatment in 174 patients. *Clin Neurosurg* **26**: 12-95, 1979.
- 3) Dyste GN, Beck DW: De novo aneurysm formation following carotid ligation: case report and review of the literature. *Neurosurgery* **24**: 88-92, 1989.
- 4) 原 貴之, 水谷 徹: Neck clipping が困難な血栓化/大型動脈瘤に対する治療. 脳卒中の外科 **44**: 88-93, 2016.
- 5) Housepian EM, Pool JL: A systemic analysis of intracranial aneurysms from the autopsy file of the Presbyterian Hospital, 1914 to 1956. *J Neuropathol Exp Neurol* **17**: 409-423, 1958.
- 6) 加納恒男, 平山晃康, 片山容一: 血栓化を伴った未破裂巨大脳動脈瘤—治療困難例の検討—. 脳卒中の外科 **31**: 344-348, 2003.
- 7) Kasamo S, Asakura T, Yamamoto Y, Kobayashi E: Unilateral moyamoya disease associated with multiple aneurysms. -A case report and review of the literature-. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **24**: 30-34, 1984.
- 8) Kitayama Y, Tsubokawa T, Miyazaki S, Furuichi M, Hirayama T, Himi K: Growth of totally thrombosed giant aneurysm within the posterior cranial fossa. Diagnostic and therapeutic considerations. *Neuroradiology* **33**: 168-170, 1991.
- 9) 永田 泉, 菊池晴彦, 山形 専: 巨大脳動脈瘤の MRI—増大機序および血栓形成について—. *No Shinkei Geka* **18**: 1115-1120, 1990.
- 10) 西 徹, 古賀一成, 山城重雄, 濱田一也, 後藤智明, 加治正知, 牟田大助, 平原正志, 平山貴久, 倉津純一, 藤岡正導: 安全かつ有効な脳動脈瘤頸部クリッピングのための技術と工夫. 脳卒中の外科 **35**: 83-88, 2007.
- 11) 太田富雄, 川原信隆, 野崎和彦, 吉峰俊樹, 若林俊彦編: 脳神経外科学 改訂 12 版. 京都, 金芳堂, 2016.
- 12) 岡内正信, 新堂 敦, 川西正彦, 田宮 隆: 中大脳動脈部分血栓化動脈瘤の 2 症例. 脳卒中の外科 **45**: 403-408, 2017.
- 13) O'Neill M, Hope T, Thomson G: Giant intracranial aneurysms: diagnosis with special reference to computerized tomography. *Clin Radiol* **31**: 27-39, 1980.
- 14) 尾崎沙耶, 井上明宏, 宮崎 始, 尾上信二, 市川晴久, 福本真也, 岩田真治, 河野兼久: 出血発症成人片側もや病に多発性未破裂脳動脈瘤を伴った 1 例. *No Shinkei Geka* **44**: 121-128, 2016.
- 15) 佐々木貴史, 村上謙介, 安達章子, 野下展生, 高橋俊栄, 金子宇一: 再疎通を伴う瘤内血栓化を認めた前大脳動脈末梢部小型動脈瘤の 1 例. 脳外誌 **25**: 349-354, 2016.
- 16) Spallone A, Cantore G: The role of extracranial carotid abnormalities in the genesis of the cerebral aneurysms. *J Neurosurg* **55**: 693-700, 1981.
- 17) 竹田理々子, 小倉丈司, 中島弘之, 吉川雄一郎, 栗田浩樹: 脳幹への mass effect を有する部分血栓化巨大脳動脈瘤に対する頸部 clipping および瘤内血栓除去術の治療成績. 脳卒中の外科 **45**: 458-463, 2017.
- 18) 矢野昭正, 三好康之, 吉本祐介, 西本 健: 動脈瘤内血栓化あるいは壁内出血による突然の頭痛によって発症した後大脳動脈 large aneurysm の 1 例. 脳卒中の外科 **28**: 222-225, 2000.
- 19) 安井敏裕, 矢倉久嗣, 小宮山雅樹, 夫 由彦, 永田安徳, 田村克彦: 巨大脳動脈瘤において破裂以外の機序で急激な症状の増悪を来すメカニズム—壁内出血ならびに瘤内血栓化—. *No Shinkei Geka* **21**: 897-901, 1993.

要 旨

短期間で増大、瘤内血栓化および再開通を認めた小型未破裂脳動脈瘤の 1 例

萩田 大地 山城 重雄 加治 正知 牟田 大助 竹崎 達也 賀来 泰之
 竹島 裕貴 鈴木 悠平 後藤 智明 山本 東明 西 徹

約 1 カ月の経過で急速に増大し、瘤内血栓化および再開通をきたした小型未破裂前交通動脈瘤の 1 例を経験した。症例は 64 歳女性。軽度の頭痛を主訴に近医を受診し、MRI で 3 mm 大の前交通動脈瘤を指摘された。また、左内頸動脈の狭窄ともやもや血管も併存していた。その後約 1 カ月の経過で同動脈瘤は 2 度の血栓化と再開通を繰り返し、長径は 3 mm から最大 9 mm まで増大したため、破裂リスクが高いと判断し、開頭クリッピング術を行った。瘤内血栓化と再開通をきたす動脈瘤は急速に増大し破裂する危険性が高いため、早期に適切な治療介入を講じるべきである。また、片側もやもや病の合併が前交通動脈瘤の発生および増大に関与した可能性があると考えた。

脳外誌 **27**: 852-857, 2018