症例報告

Three-dimensional CT angiography が有用であった persistent primitive hypoglossal artery の1例

高 畠 靖 志   宇 野 英 一   若 松 弘 一
岡 田 由 恵   金 子 拓 郎   土 屋 良 武

Three-dimensional Computerized Tomography Angiography in a Persistent Primitive Hypoglossal Artery: A Case Report

by

Yasushi Takabatake, M.D., Eiichi Uno, M.D., Kouichi Wakamatsu, M.D.,
Yoshie Okada, M.D., Takuro Kaneko, M.D., and Yoshitake Tsuchiya, M.D.

from

Department of Neurosurgery, Fukui-ken Saiseikai Hospital

A 62-year-old man was admitted to our hospital suffering from right hemiparesis and dysarthria. MR imaging revealed a lacunar infarction in the left corona radiata. Cerebral angiography was performed. An abnormal artery originating from the C2 level of the left internal carotid artery to the basilar artery was found. The right vertebral artery was hypoplastic. Three-dimensional computerized tomography angiography (3D-CTA) was performed to distinguish between a persistent primitive hypoglossal artery (PPHA) and a persistent primitive proatlantal intersegmental artery (PPPIA) which penetrated into the foramen magnum. The artery penetrated into the hypoglossal canal so was diagnosed as a PPHA. Examination of the patient with 3D-CTA enabled us to easily understand the structural relationship between the skull and arteries and the technique was useful for distinguishing between a PPHA and a PPPIA.

(Received June 5, 1997; accepted September 12 1997)

Key words : persistent primitive hypoglossal artery, three-dimensional CT angiography
Jpn J Neurosurg (Tokyo) 7 : 125-128, 1998

はじめに

persistent primitive hypoglossal artery (PPHA) は、胎生期における carotid-basilar anastomosis の遺残の一つで、1899 年に Batujeff³⁾ が剖検例を報告して以来、脳血管造影の普及により、報告例が増加している。PPHA をはじめとする原始遺残動脈が臨床的に問題となるのは、先天的な血管壁の脆弱性があるといわれているからであり¹⁵⁾、脳動脈瘤などの合併例の報告も多い。最近われわれは、three-dimensional CT angio-

graphy (3D-CTA) が PPHA の診断にきわめて有用であった症例を経験したので報告する。

症 例

患 者：62 歳，男性

主 訴：右上下肢脱力，ろれつ不良

現病歴：起床時よりの右上下肢脱力，ろれつ不良を認め，同日当科受診。

神経学的所見：構音障害，軽度の右不全片麻痺を認めた。

福井県済生会病院脳神経外科／〒918-8235 福井市和田中町舟橋 7-1 (連絡先：高畠靖志)

Address reprint requests to: Yasushi Takabatake, M.D., Department of Neurosurgery, Fukui-ken Saiseikai Hospital, 7-1 Funahashi, Wadanaka-machi, Fukui-shi, Fukui 918-8235, Japan

Fig. 1 Left carotid angiogram showing an abnormal artery originating from the C2 level of the left internal carotid artery to the basilar artery

神経放射線学的所見：発症同日のCTでは、以前より認める脳室拡大以外は異常を認めなかった。MRIでは、左大脳深部白質の穿通枝領域にラクナ梗塞を認め、これが今回の責任病巣と考えられた。脳血管造影を行ったところ、目だった主幹動脈の狭窄、閉塞は認められなかったが、左総頸動脈造影において、内頸動脈の第2頸椎レベルから、異常血管が分岐して脳底動脈に連続していた（Fig. 1）。脳底動脈は異常血管との吻合部より中枢側は造影されなかった。左後交通動脈は造影されず、右椎骨動脈は低形成であった。異常血管が大孔を貫くのか、舌下神経管を貫くのか明らかではなかったため3D-CTAを行った。

3D-CTAは、機種はTOSHIBA社製X-Vigorを用いた。造影剤100mlを3ml/secでbolus injectionし、投与開始20秒後より撮影を行った。撮影は、1mmスライスで、テーブル移動速度1mm/secでヘリカルスキャンを行い、画像再構成ピッチ0.5mmで立体画像を作成した。その結果、頸部で内頸動脈より分岐した血管は舌下神経管を貫いて頭蓋内に入り、脳底動脈に連続していた（Fig. 2）。後頭骨の一部を削除した画像では、異常血管が頭蓋外から舌下神経管を貫通して頭蓋内に入る様子がよくわかった（Fig. 2C）。以上より、その異常血管をPPHAと診断した。

考 察

PPHAは、胎生期における4本のcarotid-basilar anastomosisの遺残動脈の一つである。PPHAは、剖検上は1899年にBatujeff³⁾が、脳血管造影上は1950年にLindgren¹⁴⁾が最初の報告をしている。persistent primitive trigeminal arteryについて頻度が高く、0.02～0.26%とされている¹⁾。PPHAと診断し得る根拠として、Lie¹³⁾は以下の4点をあげている。すなわち、①第1頸椎～第3頸椎の高さで内頸動脈から分岐すること、②舌下神経管を通して頭蓋内に入ること、③脳底動脈は異常血管との吻合部位から末梢のみが造影されること、④後交通動脈は血管造影で造影されないことの4点である。このうち、④は必須ではないといわれている。鑑別にあたっては、persistent primitive proatlantal intersegmental artery (PPPIA)が問題となる。PPHAが舌下神経管を通して頭蓋内に入るのに対し、PPPIAは、第1頸椎上縁で椎骨動脈の水平部と吻合し、foramen magnumより頭蓋内に入る⁸⁾²⁰⁾。通常の正面・側面・斜位の血管造影では、これらの鑑別は困難である。軸位血管撮影やmodified reversed stenvens projectionによる舌下神経管撮影が有用であるといわれている⁴⁾。

3D-CTAは、Aokiら²⁾、Harbaughら⁷⁾により脳動脈瘤などの脳血管疾患に応用された。その後、helical CTの登場により¹¹⁾、thin sliceの画像が短時間で撮影

Posterior view

Postero-lateral view

Postero-lateral view

Fig. 2 Three-dimensional CT angiogram showing the primitive persistent hypoglossal artery penetrating into the left hypoglossal canal

A part of occipital bone is cut.

できるようになり、コンピューター性能の大幅な進歩もあって、飛躍的に画質が向上した。最近、脳動脈瘤や⁹⁾¹⁸⁾¹⁹⁾、頸部の内頸動脈分岐部をはじめとする閉塞性脳血管疾患¹⁶⁾¹⁷⁾に対する3D-CTAが数多く報告されるようになってきた。しかしこれまで調べ得たかぎりでは、原始遺残動脈の診断に対して3D-CTAを応用した報告はなく、本例が最初と思われる。

3D-CTAは任意の方向からの立体的な観察が可能であり、しかも空間分解能が高いため、解剖学的な位置関係を把握するのが容易である¹⁰⁾。特に、骨と血管との相互の位置関係を提示することに優れている²⁾¹²⁾。また、造影剤を使用することを除けば侵襲はほとんどなく、helical CTにより撮影するため、検査がきわめて短時間で終了することも利点の一つである¹⁰⁾¹²⁾。

今回われわれは、3D-CTAを行うことにより、異常血管が舌下神経管を貫くことを一目瞭然に示すことができ、特殊な角度による血管造影を行わなくとも、PPHAとの鑑別が容易であった。また、後頭骨の一部を削除した像を作成することにより、頭蓋内外の血管を連続して1枚の写真に示すことができ有用であった。以上から、本症例においては、①から④までのすべてを満たしており、PPHAと診断した。本症例は、上記に述べた3D-CTAの特徴が最も生かされた例の一つである。

最近、MRAにより遺残動脈が発見された例も報告さ

れており⁵⁾⁶⁾、今後、脳ドックなどで偶然発見される例も増加すると思われる。PPHAなどの原始遺残動脈には先天的な血管壁の脆弱性があるといわれており¹⁵⁾、脳動脈瘤などを合併する頻度も高い⁶⁾。したがって、遺残動脈が発見された場合には、無症状でも3D-CTAにより鑑別を行い、十分な経過観察が必要と思われる。

本症例においては、左内頸動脈より後頭蓋窩の血流の大部分が供給されるため、なんらかの原因により、相対的に本来の左内頸動脈領域の血流が低下し、穿通枝領域の血流低下をきたし脳梗塞を惹起したことも考えられるため、今後とも十分な経過観察が必要である。

結 語

1. 脳梗塞により発見されたPPHAの1例を報告した。
2. PPPAとの鑑別に3D-CTAが有用であった。

文 献

- 1) Agnoli AL: Vascular anomalies and subarachnoid hemorrhage associated with persisting embryonic vessels. *Acta Neurochir (Wien)* 60: 183-199, 1982.
- 2) Aoki S, Sasaki Y, Machida T, Ohkubo T, Minami M, Sasaki Y: Cerebral aneurysms: Detection and delineation using 3-D-CT angiography. *AJNR* 13: 1115-1120, 1992.

- 3) Batujeff E: Eine seltene Arterienanomalie (Ursprung der A. basilaris aus der A. carotis interna). *Anat Anz.* **4**: 282-285, 1899.
- 4) Bohmfalk GL, Story JL: Aneurysm of the persistent hypoglossal artery. *Neurosurgery* **1**: 291-296, 1977.
- 5) Fujita N, Shimada N, Takimoto H, Satou T: MR appearance of the persistent hypoglossal artery. *AJNR* **16**: 990-992, 1995.
- 6) 原田薫雄, 魚住 徹, 栗栖 薫, 隅田昌之, 中原章徳, 右田圭介: 遺残動脈を有する脳血管障害症例の検討. 脳外 **22**: 1153-1158, 1994.
- 7) Harbaugh RE, Schlusberg DS, Jeffery R, Hayden S, Cromwell LD, Pluta D: Three-dimensional computerized tomography angiography in the diagnosis of cerebrovascular disease. *J Neurosurg* **76**: 408-414, 1992.
- 8) 平原一穂, 朝倉哲彦, 上津原甲一: Persistent primitive hypoglossal artery を伴った脳動脈瘤の1例. 脳外 **9**: 197-202, 1981.
- 9) Hope JKA, Wilson JL, Thomson FJ: Three-dimensional CT angiography in the detection and characterization of intracranial berry aneurysms. *AJNR* **17**: 439-445, 1996.
- 10) 星 誠一郎, 角南兼朗, 久保田基夫, 砂田荘一: Spiral CT を用いた Three-dimensional CT angiography による脳血管病変の描出. CI 研究 **16**: 157-164, 1994.
- 11) Kalender WA, Seissler W, Klotz E, Vock P: Spiral volumetric CT with single-breath-hold technique, continuous transport, and continuous scanner rotation. *Radiology* **176**: 181-183, 1990.
- 12) 栗原紀子, 日向野修一, 高橋昭喜: 頭部のヘリカル CT. 画像診断 **16**: 1323-1329, 1996.
- 13) Lie TA: *Primitive hypoglossal artery in congenital anomalies of the carotid arteries*. Amsterdam, Excerpta Medica Foundation, 1968, pp. 76-83.
- 14) Lindgren E: Percutaneous angiography of the vertebral artery. *Acta Radiol* **33**: 389, 1950.
- 15) 宗本 滋, 駒井杜詩夫, 石黒修三, 木村 明, 池田正人, 北林正宏: Persistent primitive hypoglossal artery の1例. 臨放 **30**: 1497-1500, 1985.
- 16) Napel S, Marks MP, Rubin GD, Dake MD, McDonnell CH, Song SM, Enzmann DR, Jeffrey Jr. RB: CT angiography with spiral CT and maximum intensity projection. *Radiology* **185**: 607-610, 1992.
- 17) Schwartz RB, Jones KM, Chernoff DM, Mukherji SK, Khorasani R, Tice HM, Kikinis R, Hooton SM, Stieg PE, Polak JF: Common carotid artery bifurcation: Evaluation with spiral CT. *Radiology* **185**: 513-519, 1992.
- 18) Schwartz RB, Tice HM, Hooton SM, Hsu L, Stieg PE: Evaluation of cerebral aneurysms with helical CT: Correlation with conventional angiography and MR angiography. *Radiology* **192**: 717-722, 1994.
- 19) 田邊純嘉, 大滝雅文, 上出廷治, 端 和夫, 鈴木 進, 高橋八三郎: Three-dimensional CT angiography (3D-CTA) による破裂・未破裂脳動脈瘤の診断. 脳外 **23**: 787-795, 1995.
- 20) 継 淳, 松前光紀, 池田 公, 佐藤 修: Persistent primitive hypoglossal artery aneurysm の1例. 脳外 **18**: 95-100, 1990.

要 旨

Three-dimensional CT angiography が有用であった
persistent primitive hypoglossal artery の1例

高畠 靖志   宇野 英一   若松 弘一
岡田 由恵   金子 拓郎   土屋 良武

脳梗塞で発症した 62 歳の男性. 脳血管造影で, 左内頸動脈から分岐し, 脳底動脈へと連なる異常血管を認めた. 対側の椎骨動脈は低形成であった. three-dimensional CT angiography (3D-CTA) を行ったところ, その異常血管は舌下神経管を貫いて後頭蓋窩へ入っていることから, persistent primitive hypoglossal artery (PPHA) と診断した. 3D-CTA は任意の方向からの立体的な観察が可能であり, 空間分解能が高い. そのため, 骨と血管との相互の関係といった解剖学的な位置関係を把握するのが容易である. 本症例においては, 舌下神経管を貫くことが明確に示され, PPHA の診断に有用であった.

脳外誌 7: 125-128, 1998