症例報告

脳梗塞で発症した前大脳動脈 A2 部非外傷性解離性動脈瘤の 1 例

金井 秀 樹 小 出 和 雄 丹 羽 裕 史 梅 津 正 成

Spontaneous Dissection of the A2 Segment of the Anterior Cerebral Artery presenting Cerebral Infarction: A Case Report

by

Hideki Kanai, M.D., Kazuo Koide, M.D., Yuji Niwa, M.D., and Masanari Umezu, M.D.

from

Department of Neurosurgery, Kakegawa City General Hospital

We report a case of a nontraumatic dissecting aneurysm of the anterior cerebral artery (ACA) presenting cerebral infarction. A 57-year-old man with hypertension suddenly experienced right hemiparesis especially prominent in the lower limb and was admitted to our hospital. Plain computed tomography scan on admission did not show any ischemic lesion. Left carotid angiography revealed narrowing localized in the A2 segment of the left ACA, but failed to demonstrate the dissected lumen. Magnetic resonance (MR) imaging performed 4 days after the onset showed cerebral infarction in the left ACA territory, and MR angiography poorly disclosed the left ACA. The patient was treated conservatively and his hemiparesis was much improved. An oblique view of the second angiography performed 13 days after the onset clearly demonstrated the dissected lumen with the persisting stenosis, the so-called "double lumen sign", at the A2 segment of the left ACA. Conservative treatment with antiplatelet agent was continued and there has so far been no recurrence of cerebral infarction. We reviewed 26 reported cases, including our own, with nontraumatic and symptomatic dissecting aneurysm confined to the ACA.

(Received November 4, 1998; accepted March 7, 1999)

Key words : dissecting aneurysm, anterior cerebral artery, cerebral infarction

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 8 : 732-737, 1999

はじめに

外傷に起因しない頭蓋内の解離性動脈瘤 (DA) の中でも前大脳動脈 (ACA) に限局した DA は、最近報告が増えているが、文献で渉猟し得るかぎり比較的稀な疾患であり、その病態に関してはまだ不明な点が多い。今回著者らは、脳梗塞をきたして発症し、初回の脳血管撮影では解離腔を確認できなかったが、2 回目の血管撮影で左 ACA の A2 部に限局し、狭窄した血管腔の背外側に沿って解離腔を描出し、非外傷性の左 ACA DA と診断した 1 例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 57 歳, 男性

主 訴: 右上下肢の脱力感

既往歴: 高血圧を指摘されていたが放置していた。頭部外傷の既往はない。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 突然、下肢に強い右側の脱力感をきたして歩行できなくなり、当科を受診し、脳梗塞の疑いで入院となった。

入院時所見: 意識は 3 (3・3・9 方式) であり、徒手筋力テストで上肢は 3/5, 下肢は 1/5 の右片麻痺を認め

掛川市立総合病院脳神経外科 / 〒436-8502 掛川市杉谷 721 [連絡先: 金井秀樹]

Address reprint requests to: Hideki Kanai, M.D., Department of Neurosurgery, Kakegawa City General Hospital, 721 Sugiya, Kakegawa-shi, Sizuoka 436-8502, Japan

Fig. 1 Lateral view of left carotid angiography on admission showing the narrowing of the A2 segment of the left anterior cerebral artery (arrows)

There was no findings suggesting the dissection of the anterior cerebral artery.

Fig. 2 Sagittal view of fluid-attenuated inversion recovery image showing cerebral infarction in the left anterior cerebral artery territory as high-intensity areas (TR 6,000 msec, TI 1,700 msec, TE 120 msec)

A/B

Fig. 3 A: Oblique view of the second left carotid angiography showing the narrowing of the A2 segment of the left anterior cerebral artery with irregularity

B: Another oblique view of the second left carotid angiography demonstrating persisting narrowing of the A2 segment of the left anterior cerebral artery and dissected lumen (arrows), the so-called "double lumen sign"

た。血液学的検査では、中性脂肪が高値を示した。

放射線学的検査所見および入院後経過：入院時のCTでは、明らかな虚血巣や出血を認めなかった。発症から約6時間後に施行した脳血管撮影では、左ACAのA2部に限局して、frontopolar arteryを分岐後より、著明な血管内腔の狭窄を認め（Fig. 1）、DAも疑ったが明らかな解離腔を確認できず、この時点では確定診断には至らなかった。発症4日後のMRIでは、左ACA領域に梗塞巣が明らかになり（Fig. 2）、MRアンギオグラフィー

では、左側ACA A2部の描出が不良であった。オザグレルナトリウムを投与し、リハビリテーションを開始した。その後再発はなく、入院後上肢の運動障害は完全に回復し、1週間後からは杖歩行も可能となった。発症後13日目に再び左頸動脈撮影を行った結果、斜位像で、初回の時と同じ範囲に左ACAのA2部に限局した血管腔の狭窄所見と、さらにこれにほぼ伴行するように一部不整な線状の造影所見が得られ、double lumen signと考えられ、左ACA A2部のDAと診断した（Fig. 3）。

Table 1 Summary of reported cases with ACA DA presenting cerebral infarction

Case No.	Author	Year	Age	Sex	HT	Symptoms	Lesion	Therapy	Outcome
1	Nakazawa ¹⁵⁾	1984	43	M	N	H, Convulsion	L) A 2	C	Alive
2	Sasaki ¹⁷⁾	1991	57	M	Y	H, P	R) A 2-3	C	Alive
3	Terai ²⁰⁾	1991	51	M	Y	H, P, Incontinence	L) A 2-3	C	Alive
4	Kidooka ⁸⁾	1993	45	M	Y	H, P	L) A 2-3	S(wrapping)	Alive
5	Ishikawa ⁶⁾	1993	42	M	N	H, P	R) A 2	S(wrapping)	Alive
6	„		50	M	?	P	L) A 1	C	Alive
7	Araki ¹¹⁾	1996	52	M	Y	H, P	R) A 2	C	Alive
8	Nagata ¹⁴⁾	1996	43	M	N	H, P	L) A 2-3	S(A 3-A 3 bypass+trapping)	Alive
9	Koyama ¹⁰⁾	1996	45	M	N	H, P	R) A 2	C	Alive
10	„		44	M	N	P	L) A 2	C	Alive
11	Kohama ⁹⁾	1996	45	M	N	P	L) A 2	S(A 3-A 3 bypass+trapping)	Alive
12	Okuno ¹⁶⁾	1996	50	M	Y	H, Incontinence	R) A 2	S(trapping)	Alive
13	Yamaguchi ²¹⁾	1998	53	M	Y	P	R) A 2-3	C	Alive
14	Present case	1999	57	M	Y	P	L) A 2	C	Alive

H T: hypertension Y: yes N: no H: headache P: paresis R: right L: left S: surgery
C: conservative treatment

Table 2 Summary of reported cases with ACA DA presenting subarachnoid hemorrhage

Case No.	Author	Year	Age	Sex	HT	Symptoms	Lesion	Therapy	Outcome
1	Gherardi ²⁾	1967	26	F	Y	H, Cons D	R) A 1	C	Death
2	Tajima ¹⁹⁾	1988	53	M	?	H, Cons D	R) A 3	S(clipping)	Alive
3	Guridi ³⁾	1993	72	F	Y	H	L) A 3	C	Death
4	Kagami ⁷⁾	1994	69	F	?	H	R) A 1	S(trapping)	Death
5	Suzuki ¹⁸⁾	1994	53	M	?	H	R) A 1	S(trapping)	N D
6	Lanzino ¹¹⁾	1997	51	F	?	H	L) A 2	C	Alive
7	Matsumoto ¹²⁾	1997	58	F	Y	H	R) A 1	S(trapping)	Alive
8	Yamamoto ²²⁾	1998	43	M	N	Cons D	L) A 1	S(trapping)	Alive

H T: hypertension Y: yes N: no H: headache Cons: consciousness D: disturbance
R: right L: left S: surgery C: conservative treatment N D: not described

Table 3 Summary of reported cases with ACA DA presenting intracerebral hemorrhage or the association of infarction and subarachnoid hemorrhage on CT

Case No.	Author	Year	Age	Sex	HT	Symptoms	Lesion	Therapy	Outcome
1	Yasukawa ²⁵⁾	1993	62	M	Y	Speech D	L) A 2-3	S(A 3-A 3 bypass+trapping)	Alive
2	Yano ²⁴⁾	1995	27	M	N	H, P	L) A 4	S(trapping+resection)	Alive
3	Hayashi ⁴⁾	1996	36	M	Y	Cons D, P	R) A 2	C	Alive
4	Honda ⁵⁾	1997	48	F	N	H, P	L) A 1-2	S(clipping)	Alive

H T: hypertension Y: yes N: no D: disturbance H: headache P: paresis Cons.: consciousness
R: right L: left S: surgery C: conservative treatment

静脈相における解離部での造影剤の停滞はみられなかった。

患者はその後まもなくして独歩退院して社会復帰し、発症から9カ月経過した現在、抗血小板剤を服用中であるが再発はみられていない。MR アンギオグラフィーでの左側 ACA の狭窄所見は変化なく存続している。

考 察

著者らが現在までに文献上で渉猟し得た ACA DA のうちで、剖検時に発見された症例を除き、外傷に起因しないで発症した ACA DA に限ると自験例を含め 26 例あった (Table 1~3)。年齢は 26~72 歳 (平均 49.0 歳) にわたり、性別は、男性 20 例 (76.9%)、女性 6 例であった。CT 所見や髄液検査などから確認された発症形式は、出血性脳梗塞も含め脳梗塞のみを呈した例 (脳梗

塞発症群, Table 1) が14例 (56.0%) で最も多く, クモ膜下出血 (SAH) のみをきたした例 (SAH 発症群, Table 2) は8例 (30.8%) であった. また, 脳梗塞と SAH²⁵⁾, SAH と脳内出血²⁴⁾, 脳梗塞後に SAH⁵⁾ あるいは脳内出血のみ⁴⁾をきたした症例がそれぞれ1例ずつあった (Table 3). ACA の非外傷性 DA は, 本邦における椎骨脳底動脈系の非外傷性 DA²³⁾ に比べ, 脳梗塞で発症することが有意に多い ($p < 0.01$, χ^2 検定).

以下, 特に脳梗塞発症群と SAH 発症群について臨床像を比較検討した. まず, 発症時の年齢は, 脳梗塞発症群では 48.4 ± 5.2 歳, SAH 発症群では 53.1 ± 14.5 歳であり, 有意差 (t 検定) には至らなかったが, 脳梗塞発症群ではより若年に発症する傾向にあった. 性別をみると, 脳梗塞発症群は全例が男性であり, SAH 発症群では女性5例, 男性3例であり, 両群間で有意差がみられた ($p < 0.001$, χ^2 検定). ちなみに, 脳梗塞発症群が SAH 発症群に比べ, より若年者に多い傾向にあり, また男性に多いという臨床像は, 脳底動脈に局限した DA にもみられている¹³⁾.

既往に高血圧症が認められたのは, 脳梗塞発症群, SAH 発症群, その他でそれぞれ7, 3, 2例であり, 各群の約半数に高血圧症を認めた. これまで, 本疾患の解離の原因は確定していないが, 高血圧の関与が指摘されており^{1) 4) 21) 25)}, 発症形式の違いにかかわらず解離には高血圧が関与している可能性が考えられた.

初発症状は, 脳梗塞発症群では麻痺12例, 頭痛9例, 尿失禁2例などであり, 7例が頭痛と麻痺をきたしており, 脳梗塞をきたした ACA DA の特徴の一つとして, 従来の指摘通り麻痺に頭痛を伴う比率が高い. 麻痺については, ACA 領域の梗塞であるため, 通常上肢よりも下肢に顕著な運動障害をきたす. 一方, SAH 発症群ではほとんど (87.5%) に頭痛を生じていたが, 局所脱落症状は呈していなかった.

ACA DA の確定診断は, 脳梗塞発症群では全例血管撮影によって得られており, その解離部位は, 左側8例, 右側6例であり, また, A1, A2, A2~A3部にそれぞれ1, 9, 4例の解離を認めており, A2部が解離に巻き込まれることが多い. 一方 SAH 発症群では, 脳血管撮影では解離部が同定されず, 手術や剖検から明らかにされた場合もあり^{3) 22)}, 解離部位は, 右側5例, 左側3例で, A1, A2, A3部にそれぞれ5, 1, 2例と解離は A1部に多い. A2部に解離を認める比率は脳梗塞発症群で有意に高く ($p < 0.001$, χ^2 検定), A1部に解離を認める比率は SAH 発症群で有意に高く ($p < 0.001$, χ^2 検定), ACA DA は解離部位によって発症しやすい形式

がある可能性を示唆した.

ACA DA と診断された際の脳血管撮影の所見として, 脳梗塞発症群では, pathognomonic sign である double lumen sign が自験例を含め8例 (57.1%)^{1) 10) 14) 17) 20) 21)} に, pearl and string sign (または string and pearl sign) が5例^{6) 8) 10) 16) 21)} にみられた. SAH 発症群では, aneurysmal (または bulbous) dilatation などの拡張性病変を5例 (62.5%)^{7) 11) 12) 18) 19)} に認めたが, double lumen sign はみられず, 解離部位が確定し得なかったり^{2) 22)}, ACA に明らかな形態異常を認めなかった症例³⁾もあることから, ACA DA を看過しないように細心の注意が必要であろう. 脳梗塞発症群では SAH 発症群に比べて解離腔の描出される頻度が高いが ($p < 0.01$, χ^2 検定), 狭窄した真腔と区別し得る解離腔を見逃さないように, 血管撮影では撮影方向や拡大率なども考慮する必要があることを強調したい. ちなみに, 脳底動脈に局限した DA においても, 脳梗塞発症群では SAH 発症群に比べて double lumen sign が高率に認められており¹³⁾, 同様の傾向が示されている.

本疾患の治療法を過去の報告例からまとめると, まず脳梗塞発症群では, 9例 (64.3%) が抗血小板療法^{1) 15) 21)}, 血栓溶解薬¹⁷⁾や脳循環改善薬の投与²¹⁾などにより保存的に加療されており, 5例は外科的に治療されていた. 一方 SAH 発症群では, 再出血したために⁷⁾, あるいは再出血防止を目的として, 5例 (62.5%) に解離部の trapping や clipping などが施されており, 解離部に対して直接の外科的処置がなされていることが多い. 特に脳梗塞発症群では標準的な治療法は確立されておらず, 議論が多い. 自験例では狭窄した真腔の血流を維持するため, 発症時から抗血小板剤を投与して経過を観察中であるが, 再発はない. また, 再検査で解離腔が確認されたが, 真腔の狭窄範囲や程度は初回の所見と同様であったことから, 抗血小板剤による解離の増悪はなかったと考えている. しかし, 解離の進行を危惧して診断が得られしだい, 抗血小板療法を中止した報告もあり^{1) 21)}, 抗血栓療法の是非や有効性については意見の一致をみていない.

一方, 外科的治療としては, 解離部の trapping^{9) 14) 16)} や wrapping^{6) 8)}, さらに血流維持も考慮して, 解離部よりも末梢で A3-A3 側々吻合などを行ったうえでの解離部の trapping が施行されている^{9) 14)}. 脳梗塞発症群では, 解離部が trapping された症例^{9) 14) 16)}を除くと, 血管撮影を反復して行った結果, 解離腔が描出されなくなった例が少なくとも4例^{6) 10) 17)}に確認されている一方で, 解離腔が残存していたり新たに描出され

た例が自験例も含め5例¹⁾⁸⁾¹⁵⁾²¹⁾あった。保存的治療でも解離が進行する場合には、血行を再建しつつ解離部を根治する外科的治療も意義があると考えられるが、解離の natural history がまだ明らかではない現時点では、保存的治療のみでも十分であるのか、外科的に治療すべきであるのか、判断材料に乏しいといわざるを得ない。

ACA DA の生命予後は発症形式により異なっていた。すなわち、脳梗塞発症群の発症から41日～7カ月（平均3カ月）後の転帰をみると全例が生存しており、生命予後が良好なことを示唆する一方で、SAH 発症群では少なくとも3例（37.5%）が死亡しており、生存率において両群間に有意差を認めた（ $p < 0.001$, χ^2 検定）。しかし脳梗塞発症群でも、長期予後についてはまだ不明であり、今後症例の集積と追跡調査などにより明らかにすべきであろう。

文 献

- 1) 荒木朋浩, 大内雅文, 池田 裕: 前大脳動脈解離性動脈瘤の1例. 脳外 24: 87-91, 1996.
- 2) Gherardi GJ, Lee HY: Localized dissecting hemorrhage and arteritis. *JAMA* 199: 187-188, 1967.
- 3) Guridi J, Gallego J, Monzon F, Aguilera F: Intracerebral hemorrhage caused by transmural dissection of the anterior cerebral artery. *Stroke* 24: 1400-1402, 1993.
- 4) 林 央周, 福田 修, 遠藤俊郎, 高久 晃: 脳内出血で発症した前大脳動脈解離性脳動脈瘤の1例. 脳神経 48: 1053-1056, 1996.
- 5) 本田直美, 弓削龍雄, 宮城 潤, 重森 稔: 前大脳動脈解離性動脈瘤の1手術例. 脳外誌 6: 634-638, 1997.
- 6) 石川陵一, 砂川繁夫, 伊東 功, 岩下一彦: 前大脳動脈の解離性動脈瘤の経験. 脳外 21: 355-359, 1993.
- 7) 各務 宏, 高野淳治, 小野塚 聡, 村上秀樹: クモ膜下出血で発症したA1部解離性動脈瘤の一例 (会議録). 日赤医学 46: 114, 1994.
- 8) Kidooka M, Okada T, Sonobe M, Nakazawa T, Handa J: Dissecting aneurysm of the anterior cerebral artery: Report of two cases. *Surg Neurol* 39: 53-57, 1993.
- 9) 小濱好彦, 金子貞男, 小林浩之, 堀 まゆみ, 上山博康: 前大脳動脈解離性動脈瘤の1例. 岩見沢市立総合病院医誌 22: 95-102, 1996.
- 10) Koyama S, Kotani A, Sakaki J: Spontaneous dissecting aneurysm of the anterior cerebral artery: Report of two cases. *Surg Neurol* 46: 55-61, 1996.
- 11) Lanzino G, Kaptain G, Kallmes DF, Dix JE, Kassell NF: Intracranial dissecting aneurysm causing subarachnoid hemorrhage: The role of computerized tomographic angiography and magnetic resonance angiography. *Surg Neurol* 48: 477-481, 1997.
- 12) 松本 強, 山浦生也, 谷 栄一, 福島康久, 夏目重厚: クモ膜下出血で発症した前大脳動脈解離性動脈瘤の1例. 脳卒中の外科 25: 472-475, 1997.
- 13) Mori K, Nakayama T, Cho K, Hirano A, Maeda M: Dissecting aneurysms limited to the basilar artery: Report of two cases and review of the literature. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 7: 213-221, 1998.
- 14) 永田和哉, 佐藤邦夫: 前大脳動脈の解離性動脈瘤に対する手術. 脳卒中の外科 24: 80-84, 1996.
- 15) 中澤拓也, 斉藤 晃, 渡邊一良, 松田昌之, 半田穰二: 前大脳動脈の解離性動脈瘤. 脳外 12: 1211-1216, 1984.
- 16) Okuno S, Ochiai C, Nagai M: Dissecting aneurysm of the anterior cerebral artery causing hemorrhagic infarction. *Surg Neurol* 45: 25-30, 1996.
- 17) Sasaki O, Koike T, Takeuchi S, Tanaka R: Serial angiography in a spontaneous dissecting anterior cerebral artery aneurysm. *Surg Neurol* 36: 49-53, 1991.
- 18) 鈴木 望, 苔米地正之, 山本和秀: 前大脳動脈解離性動脈瘤の2症例 (会議録). 日赤医学 46: 115, 1994.
- 19) 田島賢一, 西岡 宏, 佐藤啓男, 蓮江正道: クモ膜下出血にて発症し前大脳動脈解離性動脈瘤と診断された1例. 東京都医師会雑誌 41: 74-75, 1988.
- 20) 寺井 敏, 松原俊幸: 前大脳動脈に局限した解離性脳動脈瘤の1例. 脳卒中 13: 159-164, 1991.
- 21) 山口 智, 沖 修一, 三上貴司, 川本行彦, 伊藤陽子, 桑本健太郎: 前大脳動脈に局限した解離性動脈瘤の1例. 脳外誌 7: 230-234, 1998.
- 22) 山本博道, 福田 修, 斉藤隆景, 遠藤俊郎, 高久 晃: くも膜下出血にて発症した前大脳動脈A1部解離性動脈瘤の1例. 脳外誌 7: 310-314, 1998.
- 23) 山浦 晶, 小野純一, 久保田基夫: 本邦における解離性脳動脈病変の研究—非外傷性頭蓋内病変の検討. 脳外誌 4: 189-192, 1995.
- 24) Yano H, Sawada M, Shinoda J, Funakoshi T: Ruptured dissecting aneurysm of the peripheral anterior cerebral artery: Case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 35: 450-453, 1995.
- 25) 安川浩司, 上條幸弘, 百瀬玄機, 小林 茂, 池田 公: クモ膜下出血と脳梗塞を同時にきたして発症した, 前大脳動脈解離性動脈瘤の1例. 脳卒中の外科 21: 461-466, 1993.

要 旨

脳梗塞で発症した前大脳動脈 A2 部非外傷性解離性動脈瘤の 1 例

金井 秀樹 小出 和雄 丹羽 裕史 梅津 正成

著者らは、脳梗塞をきたした前大脳動脈 (ACA) A2 部の非外傷性解離性動脈瘤の 1 例を経験した。症例は、高血圧症の既往を有する 57 歳男性で、突然下肢に強い右片麻痺をきたした。入院時の CT では異常はなく、頸動脈撮影で左 ACA の A2 部に狭窄を認めたが、解離腔は確認できなかった。保存的に加療したが、発症 4 日目の MRI では左 ACA 領域に梗塞が明らかとなり、左 ACA A2 部の描出は不良であった。13 日目に再度施行した頸動脈撮影の斜位像で、存続する左 ACA A2 部の血管腔の狭窄と、この背外側に描出される解離腔とからなる double lumen sign を認めた。右上下肢の機能は回復し、抗血小板剤を投与して 9 カ月を経過した現在再発はみられていない。

脳外誌 8:732-737, 1999

会 員 の 皆 様 へ

●入会・転居・休会のご案内●

1. 入会ご案内

入会ご希望の方は申込み書一式を電話、FAX あるいは葉書にて事務局までご請求ください。

入会金 5,000 円

年会費 15,000 円 (専門医, 新専門医)

10,000 円 (非専門医, 協会員, 外国人会員)

2. 脳神経外科ジャーナル送付についてのお断り

機関誌“脳神経外科ジャーナル”を年間 12 冊発行し、入会された時点から送付させていただきます。ただし、入会時以前に発行されたその年度分の機関誌については送付されません。ご了承ください。

3. 会費の納入期について

当該年度の会費は総会の開かれた年の年末までに納入するようご協力ください。

4. 会費長期未納の方へ

分割支払もお受けしたいと思いますので、事務局へご相談ください。

5. 転居・転任される方へ

転居・転任される方は速やかに学会事務局までご一報ください。

6. 国外留学される方へ

国外留学される方は、留学予定期間・留守中連絡方法および送付先などを渡航前に学会事務局までご一報ください。留学期間中、休会という形をとられますと、その期間の“脳神経外科ジャーナル”をお受け取りになれません。機関誌をご希望の方は、会費をあらかじめ全納いただくか、各年度毎に納入してください。

日本脳神経外科コングレス事務局

〒113-8421 東京都文京区本郷 2-1-1

順天堂大学医学部脳神経外科内

TEL 03-3813-1039 FAX 03-5684-3096