症例報告

脳底動脈遠位部窓形成部に発生した破裂性動脈瘤の1例

福島庸行 高木卓爾 布施孝久*

A Ruptured Aneurysm on the Distal Basilar Artery Fenestration: A Case Report

by

Tsuneyuki Fukushima, M.D., Takuji Takagi, M.D., and Takahisa Fuse, M.D.*

from

Department of Neurosurgery, Higashi Municipal Hospital of Nagoya, and

*Department of Neurosurgery, Nagoya City University Medical School

We report a 59-year-old woman who suffered from subarachnoid hemorrhage and had a saccular aneurysm on the fenestration in the distal third of the basilar artery. The anteriorly projecting aneurysm arising at the proximal end of the fenestration was clipped via the subtemporal transtentorial approach.

We reviewed 64 cases of aneurysms on the basilar artery fenestration including ours. The group consisted of 32 men and 30 women, and 2 unidentified cases. Their ages ranged from 19 to 78 years. There were 10 patients (15.6 %) younger than 30 years old, 15 (23.4 %) between 30-39, 20 (31.3 %) between 40-49, 10 (15.6 %) between 50-59, and 7 (10.9 %) older than 60, respectively. Fifty four patients (84.3 %) presented subarachnoid hemorrhage, 6 (9.4 %) presented a focal neurological deficit, 2 (3.2 %) had incidental aneurysms, and in the other 2 the symptoms were unknown. Among the 64 cases, there were 55 (86.0 %) aneurysms located in the proximal third, 4 (6.3 %) in the middle third, and 5 (7.7 %) in the distal third of the basilar artery, respectively. Sixty two aneurysms (96.9 %) arose at the proximal end of the fenestration, and 2 aneurysms arose distally. The aneurysms projected anteriorly in 40 patients, posteriorly in 12, and anteriorly and posteriorly in 2. In the other 10 patients the direction of the aneurysms could not be identified.

The surgical approach for distal third basilar trunk aneurysms has mostly been taken via the subtemporal approach with or without tentorial incision. As an other approach, coil embolization via the intravascular approach has been reported.

(Received February 21, 1999; accepted September 13, 1999)

Key words : saccular aneurysm, fenestration, basilar artery

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 9 : 381-385, 2000

はじめに

脳底動脈窓形成は、文献上の頻度は0.5～5.3%⁵⁾³²⁾と稀な脳血管奇形である。この部における脳動脈瘤の発生はCrompton⁸⁾により初めて記載されて以来、現在までに64例の報告がみられるが、大部分は椎骨脳底動脈移行部に発生している。われわれは、脳底動脈遠位部の窓形成部に発生した破裂性動脈瘤症例を経験したので文献

的考察とともに報告する。

症 例

患者: 59歳, 女性

既往歴: 20歳のころより高血圧症を指摘されていた。

現病歴: 1994年12月26日22時ごろ、意識消失で発症した。同日某施設に入院し、翌日当科に転院した。

名古屋市立東市民病院脳神経外科〔連絡先: 福島庸行, 〒455-0037 名古屋市港区名港2-9-43 臨港病院脳神経外科〕

Address reprint requests to: Tsuneyuki Fukushima, M.D., Department of Neurosurgery, Rinkoh Hospital, 2-9-43 Meikoh, Minato-ku, Nagoya-shi, Aichi 455-0037, Japan

* 名古屋市立大学脳神経外科

Fig. 1 CT on admission

Subarachnoid hemorrhage, acute hydrocephalus and infarction in the territories of left posterior cerebral artery and left superior cerebellar artery were observed.

Fig. 2 Preoperative left VAG

The angiogram revealed a small fenestration in the distal portion of the basilar artery and an associated saccular aneurysm projecting anteriorly. Close up of the fenestration is shown below.

Fig. 3 The operative view

The operative view via the right subtemporal transtentorial approach shows the neck of the basilar artery aneurysm (large arrow) beyond the right trochlear nerve (small arrow). The brain stem was retracted to the right side by means of a spatula.

入院時所見: JCS 200, Hunt & Kosnik grade IV. CT では前橋槽, 迂回槽からテント上へ広がるクモ膜下出血を認め, 水頭症および左後大脳動脈と左上小脳動脈領域の梗塞巣を伴っていた (Fig. 1).

脳血管撮影所見: 椎骨動脈撮影上, 脳底動脈の遠位部に小さな fenestration と, その近位端より前方に突出する径 4mm の動脈瘤を認めた (Fig. 2). 動脈瘤頸部の位置は後床突起先端の 6mm 下方であった.

手術所見: 急性水頭症を合併したため, day 2 に脳室

ドレナージを併用した右 subtemporal transtentorial approach により, 第 4・5 脳神経の間から動脈瘤に接近した. 脳幹に軽く retraction をかけ, 有窓部の動脈膨隆部と動脈瘤頸部を確認し, straight clip を用いて neck clipping を施行した (Fig. 3).

術後経過: 術後は右第 3・4 脳神経麻痺が出現し, CT 上は右側頭葉挫傷が認められた. 6 日間のバルビツレート療法の後, 脳血管攣縮期を経て第 3 週目に水頭症に対して V-P shunt を施行した. リハビリテーションのため転院した後, 6 カ月後には意識は JCS 2 となり, 右 3・4 脳神経麻痺はほぼ改善したが, ADL は要介助となった.

考 察

Padget²⁶⁾によると, 脳底動脈は 2 本の primitive longitudinal neural artery が胎生 2~4 期 (5 週目) に融合して形成され, 初期段階としていくつかの島状の窓を有した不規則な形状となる. この窓が遺残すると fenestration となり, 脳底動脈のどの部分にも発生可能で複数発生し得るが¹³⁾, 大部分は椎骨脳底動脈移行部の 1 カ所のみである. 窓形成が脳底動脈近位側に多く遠位側に少ない理由は不明であるが, 融合の進行が遠位から近位へと方向性を有するのかもしれない.

この脳底動脈窓形成部の病理学的検討はすでに 1962 年から報告されており⁸⁾, 窓形成部の近位端の内側血管

Table 1 Clinical data of 64 reviewed cases of aneurysm on the fenestration of basilar artery

1. Sex		4. Location of the aneurysm in the fenestration		
Male	32(50.0)	Proximal end	62(96.9)	
Female	30(46.9)	Distal end	2(3.1)	
Unknown	2(3.1)	5. Initial clinical presentation		
2. Age		Subarachnoid hemorrhage	54(84.3)	
19-30	10(15.6)	Focal sign	6(9.3)	
30-39	15(23.4)	Incidental aneurysm	2(3.2)	
40-49	20(31.3)	Unknown	2(3.2)	
50-59	10(15.6)	6. Projection of the aneurysm		
60-78	7(10.9)	Anteriorly	40(62.5)	
unkown	2(3.2)	Posteriorly	12(18.8)	
3. Location of the fenestration in basilar artery		Both	2(3.1)	
Proximal third	55(86.0)	Unidentified	10(15.6)	
Middle third	4(6.3)			
Distal third	5(7.7)			
7. Treatment				
	Distal 1/3	Middle 1/3	Proximal 1/3	Total
Aneurysmal clipping	3	1	36	40(62.5)
or wrapping or trapping				
Ligation of vertebral	0	0	4	4(6.3)
or basilar artery				
Intravascular embolization	1	0	9	10(15.6)
Unoperated	0	2	3	5(7.8)
Unknown	1	1	3	5(7.8)

() : %

壁に中膜や内弾性板の欠損が指摘されている⁴⁾³⁴⁾。

われわれが渉猟し得た文献では、脳底動脈有窓部動脈瘤は本症例を含めて64例の報告がある^{1)~4)6)~25)27)~31)33)34)} (Table 1)。年齢・性別・発症形式の記載のある62例では、男性32例、女性30例であり、従来の報告⁶⁾⁷⁾で指摘された女性優位の傾向はない。年齢分布は30歳未満が10例、30~39歳が15例、40~49歳が20例、50~59歳が10例、60歳以上7例であり、50歳未満が70.3%と明らかに若年発症の傾向がある。発症形式はクモ膜下出血が54例(84.3%)、局所神経症状が6例(9.3%)⁶⁾¹²⁾²³⁾²⁴⁾、偶然に発見されたものが2例(3.2%)³⁰⁾³⁴⁾である。

64例の病変の位置は、椎骨動脈移行部を含む脳底動脈のproximal thirdが55例(86.0%)と圧倒的に多い。脳底動脈のmiddle thirdでは4例(6.3%)⁶⁾¹³⁾²⁰⁾²⁴⁾、distal thirdはわれわれの報告を含めて5例(7.7%)²⁾⁸⁾¹⁶⁾³⁰⁾であり、本症例はきわめて稀な病変といえる。動脈瘤の方向は、前方40例、後方12例と前方突出が多く、他に前後にわたるものが2例¹⁾²⁹⁾、評価不能が10例であった。62例が有窓部近位側に発生しており、血行力学的要因が動脈瘤発生に強く関わることを示している。動脈瘤が有窓部遠位側に発生したとされる2例は、

basilar tip aneurysmの直下に有窓部が位置したり²⁾、動脈瘤の直上にもう一つ有窓部が存在したり¹¹⁾する点で純粋な遠位側発生とはいいたがたい症例であった。

治療方針は動脈瘤の高さで異なり、脳底動脈proximal thirdの55例では、動脈瘤のclipping^{1)~3)6)7)9)14)15)17)19)21)22)25)29)33)}、wrapping²⁷⁾、trapping¹¹⁾が36例に、椎骨動脈のligationが4例⁶⁾¹⁰⁾²³⁾、血管内手術による瘤内塞栓が9例¹²⁾²⁸⁾³⁰⁾、未手術3例⁴⁾³⁰⁾³⁴⁾、不明3例⁶⁾¹⁸⁾³¹⁾である。開頭はtranscondylar¹¹⁾を含めたsuboccipital approachが最も多く、他はanterior transpetrosal⁷⁾¹⁹⁾やtransclival approach²¹⁾²⁷⁾が用いられた。

脳底動脈middle thirdの4例では、未手術2例¹³⁾²⁴⁾、pterional approachによるclippingが1例²⁰⁾、不明1例⁶⁾である。脳底動脈distal thirdでは5例中4例で治療の記載があり、coil embolizationが1例³⁰⁾、subtemporal approachによるwrapping 1例²⁾、そしてsubtemporal transtentorial approachによるclipping¹⁶⁾がわれわれの報告を含めて2例である。われわれの症例では、subtemporal, pterional いずれのアプローチでも可能と思われたが、動脈瘤が後床突起より下方にあり、かつ斜台に接近していたこと、加えてdomeが

前方に向き、穿通枝の走行から考えても側方からの接近が有利との理由で subtemporal transtentorial approach を選択した。問題点としては、側頭葉挫傷の他に、脳幹前面の観察時に脳幹の圧迫が必要になること、術後 3・4 脳神経麻痺が出現しやすいことがあげられる。

周術期死亡は transclival approach 後の髄膜炎²¹⁾や、血管攣縮¹⁵⁾、肺塞栓²⁸⁾等が原因である。報告の大部分は転帰良好としているが、脳神経麻痺の合併率は高く⁷⁾、総じて手術は容易ではない。

最近の血管内外科の発達に伴い、同部の動脈瘤にも塞栓術が応用されている。最初の報告は Picard ら²⁸⁾による detachable balloon を用いた 2 例であるが、2 例とも recanalization による second embolization を必要としている。Graves ら¹²⁾は、脳底動脈 proximal third に発生した large aneurysm 3 例に GDC で塞栓術を行って良好な結果を得ており、Byrner と Tasker³⁰⁾も 5 例に coil embolization を施行し、4 例に成功したと報告している。これらの報告は今後さらに増えるものと予想される。

以上、脳底動脈遠位部に発生した有窓部動脈瘤の 1 症例を報告するとともに、文献的に脳底動脈有窓部動脈瘤についてまとめた。

文 献

- 1) Abe T, Fujita H, Higano S, Tomura N, Inugami A, Shishido F, Umemura K, Nagashima M, Yasui N: A saccular aneurysm arising from the fenestration of the basilar artery: A case report. *Kurume Med J* **34**: 203-206, 1987.
- 2) Andrews BT, Brant-Zawadzki M, Wilson CB: Variant aneurysms of the fenestrated basilar artery. *Neurosurgery* **18**: 204-207, 1986.
- 3) Becker DH, Hamilton RD: Saccular aneurysm associated with fenestrated basilar artery: Case report. *Neurosurgery* **5**: 695-697, 1979.
- 4) Black SPW, Ansbacher LE: Saccular aneurysm associated with segmental duplication of the basilar artery: A morphological study. *J Neurosurg* **61**: 1005-1008, 1984.
- 5) Busch W: Beitrag zur Morphologie und Pathologie der Arteria basalis (Untersuchungsergebnisse bei 1000 Gehirnen). *Arch Psychiatr Neurol* **208**: 326-344, 1966.
- 6) Campos J, Fox AJ, Viñuela F, Lylyk P, Ferguson GG, Drake CG, Peerless SJ: Saccular aneurysms in basilar artery fenestration. *AJNR* **8**: 233-236, 1987.
- 7) Crivelli G, Bianchi M, Dario A, Dorizzi A: Saccular aneurysm associated with proximal basilar artery fenestration. *J Neurosurg Sci* **37**: 29-34, 1993.
- 8) Crompton MR: The pathology of ruptured middle cerebral aneurysms with special reference to the differences between the sexes. *Lancet* **ii**: 421-425, 1962.
- 9) Eustacchio S, Klein GE, Pendl G: Ruptured vertebralbasilar junction aneurysm associated with basilar artery fenestration. *Acta Neurochir* **139**: 923-927, 1997.
- 10) Fabrikant H: Basilar artery fenestration with an associated aneurysm. *Australas Radiol* **32**: 127-130, 1988.
- 11) Fujimura M, Sugawara T, Higuchi H, Oku T, Seki H: A ruptured aneurysm at the distal end of the basilar artery fenestration associated with multiple fenestrations of the vertebralbasilar system: Case report. *Surg Neurol* **47**: 469-472, 1997.
- 12) Graves VB, Strother CM, Weir B, Duff TA: Vertebralbasilar junction aneurysms associated with fenestration: Treatment with Guglielmi detachable coils. *AJNR* **17**: 35-40, 1996.
- 13) Hemmati M, Kim KS: A ruptured aneurysm at the basilar artery fenestration. *Radiology* **130**: 174, 1979.
- 14) Hoffman WF, Wilson CB: Fenestrated basilar artery with an associated saccular aneurysm. *J Neurosurg* **50**: 262-264, 1979.
- 15) Hoshimaru M, Hashimoto N, Kikuchi H, Kamijyo Y, Kang Y, Namura S: Aneurysm of the fenestrated basilar artery: Report of two cases. *Surg Neurol* **37**: 406-409, 1992.
- 16) 今泉俊雄, 齊藤孝次, 小林 孝, 坂本靖雄, 古明地隆宏: 遠位部脳底動脈開窓部動脈瘤の 1 例. *脳外* **24**: 639-642, 1996.
- 17) Ito J, Tanaka R, Ishii R: Saccular aneurysm at the basilar artery fenestration. *Radiat Med* **2**: 31-36, 1984.
- 18) 唐沢 淳, 菊池晴彦, 古瀬清次: 眼底動脈窓形成. *神経内科* **9**: 302-303, 1978.
- 19) Kato Y, Sano H, Zhou J, Yamaguchi S, Kawase T, Yokoyama T, Kanno T: Deep hypothermia cardiopulmonary bypass and direct surgery of two large aneurysms at the vertebralbasilar junction. *Acta Neurochir* **138**: 1057-1066, 1996.
- 20) 牧野憲一, 西原 功, 米増祐吉: 脳底動脈の segmental fenestration 部に発生した脳動脈瘤の 1 例. *脳卒中の外科学* **15**: 90-93, 1987.
- 21) Matricali B, Van Dulken H: Aneurysm of fenestrated basilar artery. *Surg Neurol* **15**: 189-191, 1981.
- 22) 宮城 潤, 重森 稔, 広畑 優, 吉武靖博, 杉田俊介, 倉本進賢: 脳底動脈窓形成を伴った破裂脳動脈瘤の 2 例. *脳外* **18**: 1129-1133, 1990.
- 23) 中原一郎, 菊池晴彦, 滝 和郎, 西 正吾, 山下耕助, 定藤章代, 松本晃二, 野島邦治: Basilar Artery Fenestration の近位端に増大した Large Vertebralbasilar Junction Aneurysm — 低血圧負荷および ^{99m}Tc-HMPAO SPECT を用いた Balloon Occlusion Test の有用性および治療手段の選択における考察. *脳外* **45**: 477-483, 1993.
- 24) Nakasu Y, Nakasu S, Kidooka M, Handa J: Aneurysm at the fenestration of basilar artery: Case report. *Arch Jpn Chir* **51**: 344-348, 1982.
- 25) 越智 章, 中村 稔, 河野輝昭, 森 和夫, 相川久幸: 脳底動脈窓形成部の脳動脈瘤. *脳外* **14**: 797-800, 1986.
- 26) Padgett DH: The development of the cranial arteries in the human embryo. *Contrib Embryol* **32**: 205-261,

- 1948.
- 27) Paterniti S, Guerrera S, Cambria S: Aneurisma dell'arteria basilare fenestrata. *Riv Neurobiologia* **33**: 425-431, 1987.
- 28) Picard L, Roy D, Bracard S, Per A, Marchal JC: Aneurysm associated with a fenestrated basilar artery: Report of two cases treated by endovascular detachable balloon. *AJNR* **14**: 591-594, 1993.
- 29) San-Galli F, Leman C, Kien P, Khazaal J, Phillips SD, Guérin J: Cerebral arterial fenestrations associated with intracranial saccular aneurysms. *Neurosurgery* **30**: 279-283, 1992.
- 30) Byrne JV, Tasker AD: Basilar artery fenestration in association with aneurysms of the posterior cerebral circulation. *Neuroradiology* **39**: 185-189, 1997.
- 31) Taveras JM, Wood EH: *Diagnostic neuroradiology 2nd ed.*, Baltimore, Wilkins Company, 1976, pp. 795.
- 32) Wollschlaeger G, Wollschlaeger PB, Lucas FV, Lopez VF: Experience and result with postmortem cerebral angiography performed as routine procedure of the autopsy. *Am J Roentgenol* **101**: 68-87, 1967.
- 33) 山本良裕, 国塩勝三, 角南典生, 山本祐司, 桜井 勝, 浅利正二, 鈴木健二: 脳底動脈窓形成に窓内嚢状動脈瘤を合併した1例. 臨放 **32**: 123-126, 1987.
- 34) 山本良裕, 角南典生, 山本祐司, 国塩勝三, 園部 宏: 脳底動脈窓形成と窓内嚢状動脈瘤について—2剖検例による考察. 脳卒中 **10**: 375-381, 1988.

要 旨

脳底動脈遠位部窓形成部に発生した破裂性動脈瘤の1例

福島 庸行 高木 卓爾 布施 孝久

脳底動脈遠位側に発生した有窓部動脈瘤の1症例を経験した。症例はクモ膜下出血で発症した59歳の女性で, subtemporal transtentorial approach により neck clipping を行った。今日まで報告された脳底動脈有窓部動脈瘤のうち, 遠位側 1/3 に発生した有窓部動脈瘤は5例(7.7%)とわけて稀である。検索し得た64例の臨床像, 治療法について検討してまとめた。

脳外誌 9: 381-385, 2000