症例報告

広範な側副血行を有する前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤に対してコイル塞栓術を施行したもやもや病の1例

竹下朝規¹⁾ 林健太郎²⁾ 陶山一彦¹⁾

Coil embolization for the distal anterior choroidal artery aneurysm with extensive collateral flow in Moyamoya disease: a case report

Tomonori TAKESHITA¹⁾ Kentaro HAYASHI²⁾ Kazuhiko SUYAMA¹⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Nagasaki Harbor Medical Center City Hospital

²⁾Department of Neurosurgery, Nagasaki University School of Medicine

● Abstract ●

Objective: We report a case of a ruptured distal anterior choroidal artery (AChoA) aneurysm associated with Moyamoya disease that was successfully treated by coil embolization.

Case presentation: A 70-year-old female with Moyamoya disease presented with intracerebral hematoma and underwent emergent evacuation of the hematoma. Postoperative angiogram revealed a right distal AChoA aneurysm, which was considered the culprit lesion. Initially, the occlusion of AChoA with n-butyl-2-cyanoacrylate was planned. Selective angiogram of AChoA, however, showed extensive collateral flow to the ipsilateral middle cerebral artery, thus we changed therapeutic strategy to the endovascular occlusion of the aneurysm. The aneurysm was successfully embolized with electrical detachable coils and the patient was discharged eventfully.

Conclusion: In treating distal AChoA aneurysms associated with Moyamoya disease, selective angiography was useful to evaluate the extension of collaterals, which strongly influence therapeutic strategy.

● Key words ●

Moyamoya disease, anterior choroidal artery aneurysm, coil embolization

1)長崎みなとメディカルセンター 脳神経外科

2)長崎大学病院 脳神経外科

<連絡先: 竹下朝規 〒 850-8555 長崎市新地町 6-39 E-mail: sas_take_tomo@msn.com >

(Received June 19, 2015 : Accepted September 24, 2015)

doi: 10.5797/jnet.cr.2015-0035

緒言

前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤は稀であり未だに統一した治療方針はないが、近年のデバイスの発達により血管内治療が第一選択となりつつある¹⁻³⁾。血管内治療を行う際にはカテーテル誘導の難易度や動脈瘤の性状で瘤内塞栓もしくは親動脈閉塞になるか治療方針は変わってくる^{1,2)}。今回、われわれは前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤が出血源と考えられた脳出血発症のもやもや病の1例を経験した。術前の脳血管造影では親動脈閉塞術の適応と考えたが、選択的造影を

詳細に検討し選択的瘤内塞栓術へと治療を変更し良好な結果を得た。もやもや病に合併した前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤に対する治療方針やその成績について文献的考察を加えて報告する。

症例呈示

症例：70歳女性

主訴：意識障害

既往歴：高血圧症

現病歴：もやもや病による脳内出血後遺症により左不全片麻痺を認めるも、日常生活動作は自立してい

た。意識障害にて救急搬入となり、頭部CTで脳内出血を認めたため、治療的に当科入院となった。

入院時神経学的所見：Glasgow Coma Scale E1V1M4であり、瞳孔不同はなく、直接対光反射は両側ともに迅速であり、その他の脳神経症状は認めなかった。左片麻痺(Manual Muscle Test 1/5)であった。

神経放射線学的所見：頭部CTでは右前頭頭頂葉を中心とする出血及び脳室内穿破により急性水頭症を呈していた(Fig. 1A, B)。また、右前頭葉皮質下には陳旧性血腫腔も認められた(Fig. 1B)。造影CTでは右内頸動脈終末部の閉塞を認めるものの、出血源と考えられる血管病変を認めなかった。

入院経過：もやもや病に合併した脳内出血、急性水頭症と診断し、緊急開頭血腫除去術を施行した。術中にも出血源となるような明らかな血管異常は指摘できなかった。術後の頭部CTでは血腫は除去され水頭症も改善し、集中治療室にて全身管理を行った。

術後の脳血管造影では、右内頸動脈は前脈絡叢動脈分岐後に閉塞し、基底核を中心にもやもや血管の増勢を認め、もやもや病の第三期と診断した⁴⁾。また、前脈絡叢動脈は拡張し、その末梢に3 mm大の動脈瘤を認めた(Fig. 2A, B)。頭部MRAの原画像でも基底核に動脈瘤と考えられる高信号を認めた(Fig. 1C)。

治療方針：前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤は出血源と考えられ、再出血予防のため治療を行う方針とした。動脈瘤は前脈絡叢動脈の末梢に存在し外科的直達術は困難であり、血管内治療を行うこととした。前脈

絡叢動脈は拡張しているものの屈曲、蛇行が見られるため末梢までのカテーテルの誘導は困難と考えn-butyl-2-cyanoacrylate(NBCA)による親動脈閉塞術を予定した。

血管内手術：全身麻酔下に右大腿動脈より6 Fr ガイディングカテーテルを右内頸動脈に留置した。4 Fr セルリアン G(メディキット、東京)を内頸動脈海綿静脈洞部まで進め、Silverspeed 10(ev3, Covidien, Irvine, CA, USA)を先行させ Marathon catheter(ev3, Covidien, Irvine, CA, USA)を前脈絡叢動脈の plexal point 末梢まで進めた。この部位より選択的造影を行うと3.3×3.0×2.7 mmの動脈瘤を認め、動脈瘤直前の前脈絡叢動脈の皮質枝は中大脳動脈の外側レンズ核線条体動脈へ直接吻合し、その穿通枝を逆行して中大脳動脈の皮質領域が広範囲に描出された(Fig. 3A, B, C)。親動脈閉塞では側副血行を遮断し、広範な脳梗塞を来す可能性があり、動脈瘤の選択的塞栓術が可能と判断されたため治療方針を変更した。Silverspeed 10を先行させ、瘤内へと慎重に Marathon catheter を誘導し ED coil extra soft 2.5 mm×3 cm(カネカメディックス、大阪)を1本、ED coil extra soft 1.5 mm×2 cmを3本、合計4本、9 cmで瘤内塞栓を行った。最終造影ではわずかに neck remnantが見られたが、側副血行を介する中大脳動脈の描出は良好でありこの時点で治療を終了した(Fig. 3D, E)。

術後経過：全身麻酔からの覚醒は良好であり、神経症状の増悪も認めなかった。術翌日の頭部MRI拡散強調画像では梗塞巣の出現はなく(Fig. 4A, B)、術後

Fig. 1 Imaging study on admission. A, B: CT shows intracerebral hematoma of the right frontotemporal lobe with intraventricular hemorrhage. C: MRA source imaging showing an aneurysm of distal branch of right anterior choroidal artery.

Fig. 2 Right internal carotid artery angiogram. Right internal carotid artery angiography shows occlusion of the terminal portion of the internal carotid artery with Moyamoya vessels and an aneurysm of right distal anterior choroidal artery (A: anterior-posterior view, B: lateral view).

Fig. 3 Endovascular treatment (IVR). Selective angiography of the right anterior choroidal artery demonstrated filling of the middle cerebral artery region via the retrograde flow of the perforating artery of middle cerebral artery (A: anterior-posterior view, B: lateral view). Schematic drawing showing the anastomosis between the anterior choroidal artery and middle cerebral artery (C: anterior-posterior view). The aneurysm was obliterated with ED coils, with a slight neck remnant (D: anterior-posterior view, E: lateral view). Arrowheads indicate the aneurysm. AChoA: anterior choroidal artery, An: aneurysm, LLSA: lateral lenticulostriate artery, M2: insular segment of the middle cerebral artery.

Fig. 4 Postoperative MRI.

A, B: Postoperative MRI-diffusion weighted imaging (MRI-DWI) does not show acute infarction.

C: MRA source image showing a slight neck remnant.

12日目にリハビリ目的に転院となった。術後3カ月目の頭部MRAの原画像でも動脈瘤頸部はわずかに描出されるものの明らかな再開通は認めなかった (Fig. 4C)。

考 察

前脈絡叢動脈に発生する動脈瘤は頭蓋内全脳動脈瘤の5%未満であり、その多くは内頸動脈との分枝部である⁵⁾。前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤の発生は更に稀であり¹⁾、その約半数はもやもや病に合併しており、側副血行の発達と密に関係している⁶⁾。一方、もやもや病患者においては73%で前脈絡叢動脈やその分枝が代償性に拡張し、末梢領域への血流が拡大していると報告されている⁶⁾。森岡らの報告では、出血発症のもやもや病の脳血管造影上の特徴として前脈絡叢動脈の拡張、異常分枝所見がみられるとされ、頭蓋内出血との関連性が報告されている⁷⁾。つまり、前脈絡叢動脈はもやもや病における側副血行の役割を担っているため、小児期に発達した前脈絡叢動脈の拡張、分枝状態に長期に渡る血行力学的負荷や加齢による動脈硬化などが加わり出血が見られるようになるのではないかと考察されている⁷⁾。また、脳動脈瘤の発生に関しても、もやもや病に特有の血管脆弱性に加え上記の因子が加わり、深部側副血行路にも動脈瘤が生じやすくなるのではないかとと思われる。

もやもや病に生じた前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤の治療方針には未だ統一した見解はない。そこで本症例も含めた26例を検討すると^{2,3,8,9)}、保存的に治療された8例中2例(25%)で再出血が見られ、4例(50%)が死亡し、動脈瘤の消失を得たのは2例(25%)のみであった²⁾。即時的な止血効果はないものの、flow alterationによる動脈瘤の血栓化を期待して血行再建術が施行され経過観察された例では3例中1例で動脈瘤の再破裂を来している^{2,9)}。そのため、出血発症の前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤には即時的な止血が得られる外科的直達術や血管内治療などの積極的な外科的介入が必要であると考えられる。しかし、外科的直達術では側副血行を犠牲にすることや末梢にある動脈瘤の同定が困難であることから、現在では血管内治療が治療の第一選択となりつつある^{2,3,10)}。血管内治療では、前脈絡叢動脈末梢が拡張しマイクロカテーテルの誘導が可能であり、また仮性動脈瘤の可能性が否定できた場合に選択的瘤内塞栓術が行われ、多くの例では親動脈閉塞術が選択されられると思われる。本症例では前脈絡叢動脈は拡張していたが、屈曲、蛇行が見られており末梢までのカテーテルの誘導は困難と考えNBCAによる親動脈閉塞術を行う方針とした。しかし、実際には前脈絡叢動脈の選択的造影を行うと動脈瘤の直前から分岐した皮質枝は中大脳動脈の穿通枝と直接吻合し、その

穿通枝を逆行して中大脳動脈領域が描出された。そのため、親動脈閉塞では側副血行が遮断され、広範な脳梗塞を生じる可能性が考えられたため動脈瘤の選択的塞栓術を行うこととした。当初、末梢までのマイクロカテーテルの誘導は困難と思われたが、Silverspeed と Marathon catheter の組み合わせにて末梢の動脈瘤までマイクロカテーテルを誘導できた。また、Marathon catheter は one marker しか有しておらず通常の detachable coil は使用できないが、ED coil では離脱部位をジェネレータによる警告音にて確認することが可能であり、有用な方法と思われた¹¹⁾。

前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤では仮性動脈瘤は術前に考慮すべき重要な点としてあげられる²⁾。本症例では診断造影時と治療時の動脈瘤の形状に経時的な変化がないことや造影剤の停滞など仮性動脈瘤を強く疑う所見は認めなかったが、extra soft coil を用いて慎重に塞栓を行った。もし仮性動脈瘤を疑う所見があれば、バイパス併用による親動脈閉塞など複合的な治療が必要であったであろうと思われる。

今回われわれは、出血発症のもやもや病に合併した前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤の1例を経験した。本症例のように前脈絡叢動脈の選択的造影により側副血行から中大脳動脈が描出される例は非常に稀であり、われわれが渉猟し得た範囲では初めての報告であった。もやもや病においては特有の血行動態を形成しているため、親動脈閉塞を考慮する場合には術前の脳血管造影の詳細な読影はもちろんのこと、治療直前にも選択的造影を行い、側副血行の有無により最終的な治療方針を決定する必要があると思われた。

利益相反開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

文 献

- 1) 池田宏之, 山名則和, 林晃佑, 他. 短期間に増大しコイル塞栓術を行った前脈絡叢動脈末梢部に発生した破裂脳動脈瘤の1例. 脳神経外科 42:951-959, 2014
- 2) 岡村朗健, 川本行彦, 迫田英一郎, 他. もやもや病に生じた前脈絡叢動脈末梢の動脈瘤に対して選択的コイル塞栓術を行った1例. 脳神経外科 42:437-444, 2014
- 3) 村上友太, 佐藤拓, 田村貴光, 他. 遠位部前脈絡叢動脈瘤破裂による脳内出血に対して血腫除去術とNBCAによる塞栓術を施行した片側もやもや病妊婦の1例. 脳神経外科 42:961-966, 2014
- 4) 厚生労働科学血球費補助金 難治性疾患克服事業 ウィリス動脈輪閉塞症における病態・治療に関する研究班. もやもや病(ウィリス動脈輪閉塞症)診断・治療ガイドライン. 脳卒中の外科 37:321-337, 2009
- 5) Yasargil MG: Microneurosurgery, vol. II. New York: Georg-Thieme Verlag 99-108, 1984
- 6) Yang S, Yu JL, Wang HL, et al: Endovascular embolization of distal anterior choroidal artery aneurysms associated with moyamoya disease. A report of two cases and a literature review. Interv Neuroradiol 16:433-441, 2010.
- 7) 森岡基浩, 濱田潤一郎, 甲斐豊, 他. 出血型もやもや病の再出血の特徴. 脳循環代謝 16:259-266, 2004
- 8) 豊田啓介, 福田修志, 石坂俊輔, 他. もやもや病に合併し血行再建術後に消失した末梢性破裂前脈絡叢動脈瘤の1例. 脳卒中 34:187-192, 2012
- 9) Amin-Hanjani S, Goodin S, Charbel FT, et al. Resolution of bilateral moyamoya associated collateral vessel aneurysms: Rationale for endovascular versus surgical intervention. Surg Neurol Int. 5 (Suppl 4):S155-S160, 2014
- 10) Choulakian A, Drazin D, Alexander MJ: NBCA embolization of a ruptured intraventricular distal anterior choroidal artery aneurysm in a patient with moyamoya disease. J Neurointerv Surg 2:368-370, 2010.
- 11) Horie N, Hayashi K, Morikawa M, et al: A Novel Method for Super-selective Coil Embolization Using an Extremely Soft Bare Coil through a Liquid Embolic Delivery Microcatheter. Neurol Med Chir (Tokyo) 55:605-609, 2015.

要 旨

JNET 9:310-314, 2015

【目的】もやもや病に合併した前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤に対してコイル塞栓術を行った1例を報告する。【症例】出血発症のもやもや病に対する脳血管造影にて前脈絡叢動脈末梢部に動脈瘤を認めた。液体塞栓物質による親動脈閉塞を予定し、前脈絡叢動脈の選択的造影を行ったところ、側副血行を介して中大脳動脈の皮質領域が広範に描出された。選択的瘤内塞栓術へと治療を変更し良好な結果を得た。【結論】前脈絡叢動脈末梢部動脈瘤はカテーテルの誘導性や仮性動脈瘤の可能性から親動脈閉塞術が選択されることが多い。もやもや病では前脈絡叢動脈が側副血行を介し中大脳動脈の大部分を灌流する可能性があるため、選択的造影にて側副血行を詳細に検討し治療方針を決定する必要がある。