原 著

めまいが初発症状となった原始三叉動脈遺残症例

土井 彰¹⁾・田村 耕三¹⁾・小桜 謙一¹⁾・福井 直樹²⁾A case of Persistent primitive trigeminal artery
with vertigo as the initial symptomAkira Doi¹⁾, Kozo Tamura¹⁾, Kenichi Kozakura¹⁾, Naoki Fukui²⁾¹⁾Division of Otolaryngology, Kochi Health Sciences Center²⁾Division of Neurosurgery, Kochi Health Sciences Center

A case of persistent primitive trigeminal artery with vertigo as the initial symptom is reported. The case was a 41-year-old female. Since 2002, the patient had repeated episodes of vertigo. In 2004, the patient experienced a loss of consciousness. No lesion causing dizziness was found by CT scan of the brain, MRI of the brain, ECG, brain wave examination, and a balance function test at the Department of Otolaryngology. Persistent primitive trigeminal artery and vertebrobasilar hypoplasia were suspected by MRA and the diagnosis was confirmed by angiography. It is advisable to consider MRA and angiography for vertigo or dizziness of unknown cause.

Key words: persistent primitive trigeminal artery, vertigo, initial symptom

はじめに

内頸動脈と脳底動脈を結ぶ胎生期の遺残動脈(図1)のうち、最も頻度が高いのが原始三叉動脈であり、脳血管撮影上の頻度は0.2~0.6%である^{1)~3)}。通常無症状であり、合併症の精査中あるいは脳血管撮影上偶然に発見されることが多い。合併症は脳動脈瘤が14~30%と最も多く⁴⁾⁵⁾、その他もやもや病⁶⁾、脳動静脈奇形⁷⁾、内頸動脈—海綿静脈洞瘻⁸⁾、くも膜下出血⁹⁾、脳梗塞^{10) 11)}である。原始三叉動脈そのものに対してではなく合併症に対する治療が施される^{6)~9)}。予後は合併症の状態に左右される。

これまでの報告を調べる限り、原始三叉動脈遺残の合併症である脳梗塞の経過中に、めまい発症

図1 原始血管吻合模式図

胎生期(頭臀長 8 mm~15 mm)に発生し消失する血管。斜線で示すごとく6種類ある。(文献14を改変)

¹⁾ 高知医療センター耳鼻咽喉科

²⁾ 高知医療センター脳神経外科

の報告はある¹²⁾ものの、めまいが主症状の報告は見当たらなかった。今回我々はめまいで発症した原始三叉動脈症例を経験したので報告する。

症 例

症例：41歳、女性

主訴：回転性めまい

既往歴：平成6年 C5 椎骨ヘルニア

平成16年出産。出産後約 15 kg の増加があり現在に至る。

現病歴：平成14年の秋、入浴中に景色が右に流れる状態が出現したが1時間で症状は治まった。すぐに近くの救急病院を受診したが異常を指摘されなかった。翌日近医耳鼻咽喉科を受診し、メニエール病疑いと診断された。以後めまいは発症しなかったため通院せず放置していた。

平成16年7月2日夕方、子供をあやしていると右に体が傾く感じが出現したため、すぐに近くの救急病院を受診した。また7月9日には意識消失発作が出現し、別の救急病院を受診した。7月2日、9日の2日間でCT, MRI, 心電図, 脳波, 血液検査を施行されているがいずれも異常は指摘されなかった。またいずれのめまい時にも随伴する蝸牛症状は認めなかった。

精査希望にて同年7月12日当科初診。初診時、症状は非回転性めまい（右へ傾く感じ）のみであった。

理学所見：

1. 耳鏡検査：鼓膜正常。

2. 標準純音聴力検査：右 22.5 dB, 左 23.8 dB (4分法), 左 C-5dip 型

3. 平衡機能検査：

足踏み検査、遮眼書字検査、重心動揺検査は異常を認めなかった。また注視、自発、頭位・頭位変換眼振検査で眼振を認めなかった。電気眼振図を用いた温度刺激検査（20度、水、5 ml、15秒間）では最大緩徐相速度右耳 20°/秒、左耳 26°/秒であった。

4. 一般神経学的検査：

指鼻試験正常。二頭筋反射、三頭筋反射に亢進認めず。ホフマン、トレムナー、ワルテンベルグ反射は陰性。振動覚正常。シェロングテスト陰性。他神経学的に異常所見を認めなかった。

5. 血液検査：

一般血液検査、凝固因子、血清脂質、肝機能腎機能、梅毒検査で異常を認めなかった。

6. 画像診断：

反転フィルム

実際のフィルム

図2 MRA 所見

実際のフィルムでは図示しづらいため反転像に血管名を示す。図では原始三叉動脈を図示しているが、これは血管造影の結果と照らし合わせて初めて判明した。実際にこの画像から原始三叉動脈の存在を示すことは困難である。

図3 血管造影所見

aは内頸動脈，bは椎骨動脈の造影である。a：原始三叉動脈との接続部から上下に血流が分かれていく。点線矢印は外頸動脈系の血管を，実線は内頸動脈系の血管を示す。b：点線は血流の乏しい領域を示す。

MRIでは慢性副鼻腔炎を認めたが，第8脳神経，小脳，脳幹，大脳に著変を認めなかった。MRA（図2）では右椎骨動脈低形成を認めたため，血管造影（図3）を施行したところ，左内頸動脈の造影で原始三叉動脈の存在が明らかとなり，かつ上小脳動脈には原始三叉動脈からの血流

が入り込んでいた。また，椎骨動脈の造影では右椎骨動脈が低形成かつ両側前下小脳動脈が細く，同部位からの脳底動脈形成不全を認めた（図4）。

経過

診断確定後，めまい症状が軽減しかつ頸椎ヘルニアによる左手のしびれの既往もあったためメモ

図4 血管模式図

血管径が細いところは低形成部分で血流が乏しいところである。症例は内頸動脈から原始三叉動脈を通り上小脳動脈に血流が走っている。点線矢印は血流の方向を示す。

パラミンを処方していた。しかし平成16年11月および12月に回転性めまい発作が出現し、直ちに当科を受診した。来院時には非回転性めまいになっていた。これに対し炭酸水素ナトリウムを静注したが全く効果がなかった。平成17年になりめまい症状は再び軽減してきたので、6月上旬から仕事復帰をしたが、まもなく回転性めまい発作が出現するようになった。7月から塩酸ジフェニドールを発症のたびに処方しているが、副作用である口乾燥のため定期的な服用はできていない。

なお経過中聴力の変動は認めなかった。電気眼振図検査は平成16年、平成17年の2回施行しているが、温度刺激検査の所見は変化していない。めまいの性質は、右に風景が流れる感じや右に体が傾く感じが5分から30分続いた後に非回転性めまい（二日酔い、あるいは船に乗った感じ）に変化し2～3日持続している。蝸牛症状の随伴はない。

考 察

1. めまいと原始三叉動脈遺残

経過中めまい発作に伴い意識消失発作が出現している。意識消失発作は通常、全脳虚血あるいは脳底動脈虚血で発生する。今回は心不全など全脳虚血に陥る原因を認めないため椎骨脳底動脈系の低循環、特に本症例は椎骨脳底動脈系の低形成を伴っており、これがめまいの原因と考える。

しかし、原始三叉動脈が閉鎖することで初めて

椎骨動脈から脳底動脈に至る血液循環が発生し正常な発育が起こることを考えると、本症例の椎骨脳底動脈系の低形成は原始三叉動脈遺残が根本原因に他ならない。

2. なぜ40歳前後でめまいが初発したのか

原始三叉動脈の合併症は、出血に伴う精査過程で発見されることが多い。調べた限り、出血を伴う合併症の発症年齢は、脳動静脈奇形のみ16～30歳と比較的若年であるのに対し¹⁵⁾¹⁶⁾、もやもや病・内頸動脈—海綿静脈洞瘻・脳動脈瘤・脳梗塞は40歳以降に発症する傾向にある^{6)8)～11)13)17)～23)}。この事実は原始三叉動脈遺残症例では脳動静脈奇形を除いて40歳前後で内頸動脈系あるいは椎骨脳底動脈系の血管変化・循環動態の変化が発生することを意味する。本症例では発症が41歳であり、かつ体重増加が加わったため椎骨脳底動脈系の低循環が生じたと考える。

3. めまいに対する治療

現時点ではめまい発作そのものに対する治療を試みたが無効であった。そこで視点を変え、めまい発作の予防に焦点をおいた。椎骨脳底動脈領域の血液循環をよくするため酒石酸イフェンプロジル、塩酸ジフェニドール内服が必要である。また、肥満があると低酸素状態になりやすく、血管が詰まりやすくなるため肥満のコントロール、さらに末梢循環をよくするためにメコパラミン内服が必

要である。本症例は意識消失発作を伴ったことがあり、椎骨脳底動脈系の TIA に準じた治療および予防が考慮される。

4. 合併症に対する対策

我々が調べた限り、原始三叉動脈そのものに動脈瘤が発生した報告²⁰⁾はあるが、多くは他の脳血管に生じている。

本症例では、脳動脈瘤、脳出血、脳梗塞が今後合併症として発生する可能性がある。動脈瘤が6年間のうちに出現した報告¹³⁾があり本症例でも発生する可能性があるため、血管造影またはMRAによるチェックは5～6年毎に行う予定である。

また、脳出血を予防するためには本人にとって最適となる血圧管理が重要と考える。本症例の血行動態は通常と異なり原始三叉動脈を経由して上小脳動脈に血流が送られており、この血管そのものへ手術操作を行うことや、安易に降圧剤を投与することは脳幹への血流低下、あるいはそれに伴う意識消失発作を誘発するため危険であろう。本症例では今後高血圧が出現したとき、循環器内科医師と相談して慎重に治療方針を決定する方針である。

まとめ

1. めまいで発症した原始三叉動脈遺残および椎骨脳底動脈低形成症例を経験した。

2. CT や MRI で異常を認めない原因不明のめまいに対しては MRA や脳血管造影検査まで考慮する必要がある。

3. めまいに対しては薬物療法のみならず肥満のコントロールが大切である。

4. 合併症の予防が大切である。特に血行力学的に脳動脈瘤が発生する可能性があるため、定期的に画像診断を行う予定である。さらに脳出血を予防するために血圧のコントロールが必要である。

文 献

- 1) Agnoli AL: Vascular anomalies and subarachnoid hemorrhage associated with persisting embryonic vessels. *Acta Neurochir* 60: 183-199, 1982
- 2) Miyatake S, Kikuchi H, Kondoh S, et al: Treatment of a giant aneurysm of the cavernous internal carotid artery.: case report. *Neurosurgery* 26: 315-319, 1990

- 3) Padget DH: The development of the cranial arteries in human embryo. *Contrib Embryol* 32: 205-261, 1948
- 4) Eadie MJ, Jamieson KG, Lennon EA: Persisting carotid-basilar anastomosis. *J Neurol Sci* 38: 501-511, 1964
- 5) George AE, Lin JP, Morantz RA: Intracranial aneurysm on a persistent primitive trigeminal artery. Case report. *J Neurosurg* 35: 601-604, 1971
- 6) Suzuki S, Morioka T, Matsushima T, et al: Moyamoya disease associated with persistent primitive trigeminal artery variant in identical twins. *Surg Neurol* 45: 236-240, 1996
- 7) Nakai Y, Yasuda S, Hyodo A, et al: Intratentorial arteriovenous malformation associated with persistent primitive trigeminal artery—case report. *Neural Med Chir (Tokyo)* 40: 572-574, 2000
- 8) Cook BE Jr, Leavitt JA, Dolan JW, et al: Carotid cavernous fistula associated with persistent primitive trigeminal artery. *J Neuroophthalmol* 20: 264-265, 2000
- 9) Takase T, Tanabe H, Kondo A, et al: Surgically treated aneurysm of the trunk of the persistent primitive trigeminal artery. *Neural Med Chir (Tokyo)* 44: 420-423, 2004
- 10) 金井秀樹, 山田和雄, 小松裕明, 他: 頸部内頸動脈狭窄症における側副血行路として描出された persistent primitive trigeminal artery の1例. *脳神経外科ジャーナル* 10: 475-480, 2001
- 11) Ito Y, Watanabe H, Niwa H, et al: The protective effect of a persistent trigeminal artery on brain stem infarctions: A follow-up case report. *Intern Med* 37: 334-337, 1998
- 12) 織茂智之, 後藤耕作, 小沢英輔, 他: 両側椎骨動脈低形成, 右遺残原始三叉動脈を有し, 症候群から早期に回復した若年脳梗塞の1例. *臨床神経学* 36: 993-995, 1996
- 13) 石黒雅敬, 中川俊男, 山村明範, 他: Persistent primitive trigeminal artery に合併した脳動脈瘤の新生. *脳神外科* 23: 1017-1020, 1995

- 14) 中村 貢, 甲村英二, 西尾明正: 血管解剖.
滝和郎編. 症例から学ぶ脳血管手術改訂 2 版.
67-123頁, メディカ出版, 大阪, 2004
- 15) Ohtakara K, Kuga Y, Murao K, et al: Posterior
fossa arteiovenous malformation associated with
persistent primitive trigeminal artery—case
report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 40: 169-172,
2000
- 16) Uchimo A, Matsunaga M, Ohno M: Arteriove-
nous malformation of the corpus callosum as-
sociated with persistent primitive trigeminal
artery—case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)*
29: 429-432, 1989
- 17) 藤本基秋, 中原一郎, 田中正人, 他: 神経線
維腫症 1 型に多発性脳動脈瘤, 血管奇形を合
併した 1 例. *脳神外科* 32: 355-359, 2004
- 18) 中山正基, 新納正毅, 平原一穂, 他: persis-
tent primitive trigeminal artery と metopism
を合併した破裂脳動脈瘤の 1 例. *脳神外科*
22: 651-655, 1994
- 19) Chen ST, Liu YH: Moyamoya disease associat-
ed with bilateral persistent primitive trigeminal
arteries: report of a case. *J Formos Med Assoc*
92: 385-387, 1993
- 20) 藤井幸彦, 川崎昭一, 阿部博史, 他: persis-
tent primitive trigeminal artery 本幹部動脈瘤
の 1 剖検例. *脳神外科* 16: 181-186, 1988
- 21) Kwak R, Kadoya S: Moyamoya disease associ-
ated with persistent primitive trigeminal ar-
tery Report of two case. *J Neurosurg* 59: 166-
171, 1983
- 22) 上田 孝, 呉屋朝和, 木下和夫: 多発性血管
奇形の 1 例 中大脳動脈窓形成 primitive tri-
geminal artery の遺残に合併した多発脳動脈
瘤の 1 症例. *脳神外科* 12: 531-536, 1984
- 23) 太田浩嗣, 巖本哲矢, 横田 晃: 遺残性原始
三叉動脈に対側頸部内頸動脈閉塞を伴った多
発性脳動脈瘤の手術例. *脳神外科* 32: 1045-
1048, 2004

原稿到着: 平成18年 5月17日

別刷請求先: 土井 彰

〒781-8555 高知市池2125-1

高知医療センター耳鼻咽喉科