完全自然血栓化した上部脳底動脈部分血栓化巨大動脈瘤の 1 例

稲葉 真¹⁾ 各務 宏²⁾ 峯 裕¹⁾

要旨：部分血栓化巨大脳底動脈瘤は、自然経過での予後は極めて不良である。今回自然経過で完全血栓化し、良好に経過した本疾患の 1 例を経験した。症例は既往のない 22 歳女性、中脳梗塞で発症、上部脳底動脈部分血栓化大型動脈瘤と診断された。動脈瘤は 21 mm、椎骨動脈撮影で右後大脳動脈、右上小脳動脈の描出はなく、左後大脳動脈、左上小脳動脈は動脈瘤より分枝していた。発症 4 カ月で動脈瘤の血栓化が急速に進行、左上小脳動脈起始部の描出が消失、瘤の造影部分も縮小した。発症 8 カ月で動脈瘤は 31 mm に巨大化、造影部分の増大と左後大脳動脈起始部の膨隆を認めた。加療目的で入院とし脳血管撮影を行ったところ、動脈瘤と上部脳底動脈の描出は消失していた。患者は無症状で経過、完全血栓化した動脈瘤は縮小、発症 2 年を経過して再発を認めていない。本例では左上小脳動脈、左後大脳動脈起始部の段階的血流低下が完全自然血栓化に寄与したと推察された。

Key words: giant intracranial aneurysm, spontaneous thrombosis, basilar artery

はじめに

上部脳底動脈部分血栓化巨大動脈瘤は、未治療で経過を見た時の予後は極めて不良であるが、根治的治療法も確立されていない¹⁾。今回我々は経過観察中に完全自然血栓化し良好に経過した本疾患の 1 例を経験した。今回画像で追跡しえた完全血栓化に至るまでの過程が本疾患の治療を考えるうえで重要な所見と考えられたため報告する。

症 例

患者：22 歳、女性

主訴：構音障害

既往歴：特になし

現病歴：電話中に構音障害出現し同日他院を受診、中脳梗塞、部分血栓化大型脳底動脈瘤と診断された。他院で脳梗塞に対する入院加療を受け、抗血小板剤(aspirin 100 mg/day)を内服し、発症 1 カ月で当科紹介初診した。

初診時現症：軽度の左動眼神経麻痺以外の神経脱落症状はなかった。

神経放射線学的所見：初診時頭部 MRI では、脳底動脈上部に T1 強調画像で等信号の壁在血栓を有する最大径 21.0 mm の部分血栓化動脈瘤と、中脳左側に脳梗塞を、左内頸動脈にも動脈瘤様拡張を認めた(Fig. 1A)。椎骨動脈撮影では上部脳底動脈が全周性に拡張し、右後大脳動脈(posterior cerebral artery: PCA)、右上小脳動脈(superior cerebellar artery: SCA)の描出は認められず、左 PCA、左 SCA は動脈瘤より分枝していた(Fig. 2A, B)。内頸動脈撮影にて右 PCA は右内頸動脈から描出され、左内頸動脈に紡錘状動脈瘤を認めた。左 PCA は左内頸動脈からも描出されていた(Fig. 2C, D)。

経過：患者より保存的加療の強い希望があり、抗血小板剤内服を継続し経過観察となった。動眼神経麻痺は消失し良好に経過していた。発症 4 カ月後の頭部 MRI では T1 強調画像で等信号から一部高信号の層状の動脈瘤血栓化が急速に進行し最大径が 21.5 mm とわずかに増大していたため(Fig. 1B)、脳血管撮影を施行した。椎骨動脈撮影では血栓化の進行に伴い動脈瘤の造影部分は縮小し、左 SCA 起始部の描出は消失していた(Fig. 3)。SCA 起始部の血流低下に伴い動脈瘤への血流が減少し更なる血栓化が期待できると考え、抗血小板剤内服を継続し経過観察とした。その後も無症状で経過していたが、発症 8 カ月で施行したフォローアップの頭部 MRI で動脈瘤の増大、血栓最外層に新たな出血を示す三日月

¹⁾ 済生会横浜市東部病院脳神経外科

²⁾ 済生会横浜市東部病院脳血管内治療科

(2017 年 12 月 19 日受付, 2018 年 1 月 28 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10615

Fig. 1 経時的な頭部 MRI T1 強調画像

- A : 発症 1 カ月の頭部 MRI では脳底動脈上部に 21.0 mm の部分血栓化瘤, 中脳左側に脳梗塞を認めた.
 B : 発症 4 カ月で瘤の血栓化が著明に進行したが, 最大径は 21.5 mm であった.
 C : 発症 8 カ月で瘤は 31.0 mm と著明に増大し開存腔の拡大を認めた.
 D : 発症 26 カ月後では瘤は著明に縮小している.

状の T1 高信号域の出現, 開存腔を示す無信号域(flow void)の拡大を認めたため(Fig. 1C), 頭部 three-dimensional computed tomography angiography(3DCTA)を施行した. 動脈瘤は最大径 31.0 mm と巨大化し, 左 PCA 起始部の動脈瘤壁の膨隆を認めた(Fig. 4). 動脈瘤破裂の危険が高いと考え, 加療目的で入院とした. 入院後脳血管撮影を行ったところ(発症 9 カ月), 動脈瘤と上部脳底動脈の描出は消失していた(Fig. 5A, B). 両側 PCA は内頸動脈より描出されていた(Fig. 5C, D). 退院後完全血栓化した動脈瘤は徐々に縮小し, 発症 2 年を経過して再発を認めていない(Fig. 1D).

考 察

巨大脳動脈瘤は大きさが 25 mm を超えるものとされ, 全脳動脈瘤の 5% を占め²⁾, 60% に血栓化を来すといわれている³⁾. 巨大脳動脈瘤の完全自然血栓化の報告も散見され, その頻度は 13~20% の間と報告されている⁴⁾. しかし, 本症例のように瘤の完全自然血栓化に親

動脈の閉塞も伴うものは比較的稀であり, 上部脳底動脈瘤の報告となるとさらに少なくなる⁵⁻⁸⁾. 一方で巨大脳動脈瘤の自然歴は極めて予後不良であることも知られている. 巨大脳動脈瘤は未治療で経過を見た場合, 発症から 5 年以内に約 80% の患者が死亡するか高度障害の状態になるといわれている⁹⁾. その中でも特に後方循環系の巨大脳動脈瘤は予後不良であるといわれている¹⁰⁾. すなわち本症例が自然経過で完全血栓化しかつ良好な経過をたどる可能性は極めて少なく, 本来は早期の治療を勧めるべきであったと考えられる.

本症例は動脈瘤の血栓化と増大が短期間に進行した後, 親動脈と共に瘤の完全閉塞を来した. 脳動脈瘤血栓化の機序には, 動脈瘤の形状(頸部面積に比し体部体積が大きい場合や頸部が著しく狭い), 瘤への流入血液量の低下, 瘤内の乱流, 脳動脈硬化, 血液凝固能の亢進, などが考えられている¹¹⁾. いったん血栓形成が生じると, vasa vasorum からの出血や, 壁内血栓に生じた毛細血管からの出血, もしくはこれら血管と瘤内との交通あ

Fig. 2 初診時脳血管撮影

右椎骨動脈撮影(A：正面像，B：側面像)で左後大脳，上小脳動脈は動脈瘤より分枝していた。
内頸動脈撮影側面像(C：右側，D：左側)では，両側内頸動脈から後大脳動脈が描出されていた。

Fig. 3 発症4ヵ月後左椎骨動脈撮影正面像(A)，側面像(B)

血栓化に伴う造影部分の縮小と側面像にて左上小脳動脈起始部の描出消失(矢頭)を認めた。

るいは動脈瘤壁の解離による親動脈や瘤内から血栓最外層への血液の流入により，瘤の増大と血栓化が進行していくと考えられている¹²⁾。本動脈瘤は，上部脳底動脈が全周性に膨隆し頸部を有していないが，初回の脳血管撮影では，親動脈の動脈瘤流入部の径と動脈瘤の最大径の

差は大きく，また造影剤が瘤内で乱流を形成し長時間停滞しており，これらが当初の血栓形成の一因と考えられる。次に本症例では初診時以降瘤の血栓化が急速に進行することによりまず脳血管撮影上左 SCA の起始部が消失しているが，これにより瘤への流入血液量が低下し血

Fig. 4 後方(A), 左側方(B)から見た発症 8 カ月後脳血管 3DCTA 動脈瘤の造影部分の増大, 左後大脳動脈起始部の膨隆(矢印)を認めた.

Fig. 5 発症 9 カ月後脳血管撮影
右椎骨動脈撮影(A: 正面像, B: 側面像)で動脈瘤と上部脳底動脈の描出は消失していた.
内頸動脈撮影側面像(C: 右側, D: 左側)で両側後大脳動脈は内頸動脈より描出されていた.

栓化がさらに進行し, 前述の機序で瘤の増大と血栓化が進行したと考えられる. さらに瘤が巨大化すると共に左 PCA 起始部が膨隆し, その後瘤と親動脈が閉塞したが, この過程より左 PCA 起始部の高度の血流低下が瘤と親動脈の閉塞に先行して生じたことが推察される. つまり左 PCA 起始部の膨隆による左 PCA への圧迫か血栓

の進展により左 PCA がまず閉塞に近い状態となり, 瘤への血流が著明に減少することにより親動脈と瘤が閉塞したと考えられる. すなわち本症例においては, 瘤を経由して流出する正常血管が瘤の増大, 血栓化が原因で閉塞に近い状態となり, 瘤への流入血液量が低下したことが完全血栓化に重要な役割を果たしたと考えられる.

前述したように本症例は本来早期の治療を進めるべきであったと考えられるが、上部脳底動脈部分血栓化巨大動脈瘤の治療は困難なものが多い¹⁾。Hohらは、本症例のように紡錘状、巨大、広頸、重要な血管が瘤から分枝しているなどの、クリッピング、瘤内塞栓不能な動脈瘤に対して、バイパス手技や血管内治療を複合的に用いることにより瘤周囲の血流を変化させ瘤への血行力学的負荷を減少させ、増大破裂を防ぐ治療(flow alteration)を報告している¹³⁾。また近年、新規脳血管内治療用ステントとしてフローダイバーターが開発され、本邦でも2015年10月より一部施設に臨床導入された。これにより瘤内塞栓不能の巨大動脈瘤、血栓化動脈瘤の根治が期待できるようになった¹⁴⁾。しかし、本邦では適応が内頸動脈瘤の一部に限られ、海外の報告では後方循環系の巨大動脈瘤では治療による神経学的障害ないし死亡率が40%と高値で、いまだこの部位の動脈瘤の治療には問題がある¹⁵⁾。一方で本症例のような動脈瘤に対しては従来より瘤近位の上部脳底動脈もしくは両側椎骨動脈を閉塞する治療(hunterian ligation)が行われ、ある程度の治療効果が認められている⁹⁾。脳底動脈から瘤に直接流入する血流を遮断し、瘤への血行力学的負荷を軽減し完全血栓化を期待するこの治療はflow alterationの一つといえ、Steinbergらの報告では66%が完全血栓化し、64%に良好な予後が得られている。しかし、23%に虚血による障害が出現しており、遮断後の後交通動脈などの側副血行からの血流が不足する問題があげられる。さらにこの治療のもう一つの問題点として、バイパスにより虚血の問題が解決できたとしても、後交通動脈などからの瘤への血流のため血行力学的負荷が十分に軽減できず難治性となることがあげられる¹⁾。これらの問題点を解決すべく、この部位の動脈瘤に対して瘤周囲の血流を瘤から分離することにより、瘤への血流の負荷を極力減少させ、完全血栓化を図る治療(flow reduction)がMiyamotoらにより報告され、良好な成績をあげている¹⁶⁾。この治療はhunterian ligationに加え、段階的に上部脳底動脈からの分枝のいくつかをバイパス併用下にその起始部で閉塞することにより瘤から分離し瘤周囲の血流を減少させるもので、最も治療効果の高いものとして瘤を盲端化するものをmaximum flow reductionと呼んでいる。本症例では、動脈瘤の増大と血栓化によりまず左SCA、次に左PCA起始部が閉塞に近い状態となり、最終的に瘤が盲端化し血流の負荷が著明に減少、閉塞に至ったと推察される。この過程はmaximum flow reductionの治療過程と類似しており、この治療の有効性を支持するものと考えられた。

本症例においては完全血栓化を確認後16カ月経過し、瘤の再増大や再開通を認めていない。しかし、稀ではあるが、完全血栓化動脈瘤の再開通や再増大の報告³⁾も散見されており、今後の慎重な経過観察は必要と考えられる。

結 語

自然経過で完全血栓化し良好に経過した上部脳底動脈部分血栓化巨大動脈瘤の1例を報告した。本例では左上小脳動脈、左後大脳動脈の段階的閉塞が完全自然血栓化に寄与したと推察された。

著者は日本脳卒中学会へのCOI自己申告を完了しており、本論文の発表に関して開示すべきCOIはない。

参考文献

- 1) Takahashi JC, Murao K, Iihara K, et al: Successful "blind-alley" formation with bypass surgery for a partially thrombosed giant basilar artery tip aneurysm refractory to upper basilar artery obliteration. Case report. J Neurosurg 106: 484–487, 2007
- 2) Lonjon M, Pennes F, Sedat J, et al: Epidemiology, genetic, natural history and clinical presentation of giant cerebral aneurysms. Neurochirurgie 61: 361–365, 2015
- 3) Lee KC, Joo JY, Lee KS, et al: Recanalization of completely thrombosed giant aneurysm: case report. Surg Neurol 51: 94–98, 1999
- 4) Pozzati E, Nuzzo G, Gaist G: Giant aneurysm of the pericallosal artery. Case report. J Neurosurg 57: 566–569, 1982
- 5) Ciceri EF, Lawhead AL, De Simone T, et al: Spontaneous partial thrombosis of a basilar artery giant aneurysm in a child. AJNR Am J Neuroradiol 26: 56–57, 2005
- 6) Loevner LA, Ting TY, Hurst RW, et al: Spontaneous thrombosis of a basilar artery traumatic aneurysm in a child. AJNR Am J Neuroradiol 19: 386–388, 1998
- 7) Maeda K, Usui M, Tsutsumi K, et al: Spontaneous occlusion of a giant basilar tip aneurysm and a basilar artery due to the dissection of both structures: case report. Surg Neurol 48: 606–609, 1997
- 8) Kanaan I, Lasjaunias P, Coates R: The spectrum of intracranial aneurysms in pediatrics. Minim Invasive Neurosurg 38: 1–9, 1995
- 9) Steinberg GK, Drake CG, Peerless SJ: Deliberate basilar or vertebral artery occlusion in the treatment of intracranial aneurysms. Immediate results and long-term outcome in 201 patients. J Neurosurg 79: 161–173, 1993
- 10) Michael WF: Posterior fossa aneurysms simulating tumours. J Neurol Neurosurg Psychiatry 37: 218–223, 1974
- 11) 森永一生, 上田幹也, 大川原修二: 親動脈の閉塞をきたした自然血栓化未破裂中大脳動脈瘤の1例. 脳卒中 18: 241–247, 1996
- 12) Roccatagliata L, Guédin P, Condette-Auliac S, et al: Partially thrombosed intracranial aneurysms: symptoms, evolution, and therapeutic management. Acta Neurochir (Wien) 152: 2133–2142, 2010

- 13) Hoh BL, Putman CM, Budzik RF, et al: Combined surgical and endovascular techniques of flow alteration to treat fusiform and complex wide-necked intracranial aneurysms that are unsuitable for clipping or coil embolization. *J Neurosurg* 95: 24–35, 2001
- 14) 大石英則, 寺西功輔, 矢富謙治ら: フローダイバーター臨床導入による大型脳動脈瘤に対する血管内治療のパラダイムシフト. *脳神経外ジャーナル* 26: 104–111, 2017
- 15) 松丸祐司, 天野達雄, 佐藤允之: 脳動脈瘤に対する血管内治療の戦略と手技. *脳神経外ジャーナル* 25: 27–32, 2016
- 16) Miyamoto S, Funaki T, Iihara K, et al: Successful obliteration and shrinkage of giant partially thrombosed basilar artery aneurysms through a tailored flow reduction strategy with bypass surgery. *J Neurosurg* 114: 1028–1036, 2011

Abstract

Complete spontaneous thrombosis of giant upper basilar artery aneurysm: a case report

Makoto Inaba, M.D.,¹⁾ Hiroshi Kagami, M.D.,²⁾ and Yutaka Mine, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Saiseikai Yokohamashi Tobu Hospital

²⁾Department of Neuroendovascular Therapy, Saiseikai Yokohamashi Tobu Hospital

The prognosis of the untreated giant upper basilar artery aneurysm is extremely poor. We present a case of complete spontaneous thrombosis of giant upper basilar artery aneurysm without any symptoms. A 22-year-old woman with no medical history suffered from brain stem infarction. Radiological examinations revealed a large (21 mm) partially thrombosis distal basilar artery aneurysm and left mid-brain infarction. On vertebral angiogram, the right posterior cerebral artery (PCA) and superior cerebellar artery (SCA) were not identified and the left PCA and SCA were originated from the aneurysm. She was treated conservatively. The follow-up MRI and cerebral angiogram performed 4 months after the onset showed the rapid progression of thrombosis of an aneurysm and the near occlusion of the left SCA origin without marked enlargement of an aneurysm. However, the 8-month follow-up MRI revealed that the aneurysm became giant (31 mm). The 3DCTA, at the same time, showed the enlargement of the circulating portion of an aneurysm and a protruded change of an aneurysmal wall at the origin of the left PCA. She was admitted for further management and cerebral angiography were performed 9 months after the onset, which demonstrated complete occlusion of an aneurysm and the distal basilar artery without any ischemic lesions. The patient was discharged in good condition and remains neurologically intact. The 2-year follow-up MRI demonstrated dramatic shrinkage without recanalization of an aneurysm. In this case, we speculate that the stepwise near occlusion of SCA and PCA origins plays an important role in complete thrombosis of an aneurysm.

Key words: giant intracranial aneurysm, spontaneous thrombosis, basilar artery

(*Jpn J Stroke* 41: 13–18, 2019)