Trapping + OA-PICA bypass を施行した 後下小脳動脈外傷性仮性動脈瘤の 1 例

阪本 有¹⁾ 水谷 徹¹⁾ 杉山 達也¹⁾ 清水 克悦¹⁾ 中條 敬人²⁾

要旨：症例は 35 歳男性で、頭部を壁に強打して、意識障害が進行したため当院へ搬送された。頭部単純 CT でびまん性くも膜下出血と判断したが、造影 CT では出血源が特定できず、脳血管撮影を施行した。左椎骨動脈撮影で左後下小脳動脈に造影剤が貯留する瘤状の病変が確認できたため、仮性動脈瘤の診断のもと、開頭クリッピング術を施行した。術中、明らかな瘤状成分は確認できなかったが、後下小脳動脈に、周囲に血餅を伴う裂孔が確認できた。本症例のように、後下小脳動脈遠位部に外傷による仮性動脈瘤が生じることは稀であるが、再破裂の可能性が非常に高く、鑑別として注意を要し、また、早期再破裂の予防が重要と考えられる。

Key words: PICA aneurysm, trauma, pseudoaneurysm, OA-PICA bypass

はじめに

後下小脳動脈本幹の動脈瘤 (posterior inferior cerebellar artery Aneurysm: PICA An) は、脳動脈瘤全体の 0.5~3.0% である¹⁾。その多くは囊状動脈瘤であり、本稿で提示する症例のような仮性動脈瘤は稀である^{1,2)}。今回、外傷を契機とした後下小脳動脈仮性動脈瘤 (traumatic PICA pseudo An) を経験したため、発生原因と治療方法に関し文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：35 歳男性

主訴：意識障害

既往歴：僧房弁閉鎖不全症で 14 歳時僧帽弁置換術施行。

内服：ワーファリン 4.5 mg, アルダクトン 25 mg

現病歴：後頭部を壁に強打し前医に搬送された。救急隊到着時、意識清明であった。前医診察時、後頭部に擦過傷を認める程度であったが、意識障害が進行したため、頭部単純 CT を施行した。CT では、大槽および後頭蓋窩を中心とし、迂回槽に 1 mm 以上の厚みを持つびまん性のくも膜下出血を認め (Fig. 1A)、第三、四脳室内

の血腫と急性水頭症を認めたため、WFNS 分類 Grade IV, Fisher group 3 と判断され、当院へ転院搬送された。初診時、GCS: E3V2M5, 明らかな四肢麻痺はなく、受傷 4 時間後の CT Angiography で出血源は明らかではなかった (Fig. 1B)。受傷 6 時間後に施行した脳血管撮影では、左側の PICA 起始部は椎骨動脈 (vertebral artery: VA) の頭蓋頸椎移行部の硬膜貫通直後に存在し (extracranial かつ intradural)、分岐直後で血管径が細くなり、anterior medullary segment (AMS) ~ lateral medullary segment (LMS) の近傍で壁不整を認めた。左椎骨動脈撮影で PICA の AMS から LMS の血管外に造影剤の pooling を認めた (Fig. 1C)。3DDSA では左 PICA の LMS に動脈瘤を認めた (Fig. 1D)。両側総頸動脈では明らかな出血源は認めず、両側の occipital artery (OA) の描出は良好であった。以上の所見から、SAH の原因は PICA pseudo An と判断した。このため血管内治療は不向きと考え、開頭による PICA trapping および OA-PICA bypass 術を行う方針とした。

【手術所見】手術は mid-lateral suboccipital approach にて行った。同法はすでに報告³⁾されており、本稿では簡潔に示す。腹臥位で正中を越える J 字型の皮膚切開を置き、バイパスに必要な 8 cm の OA を確保した。condyle fossa までの十分な骨削除と C1 laminectomy を含めた craniotomy を行った。次に右後角から 1 burr hole を設け脳室穿刺を行い、脳室ドレーンを留置して脳圧コント

¹⁾ 昭和大学医学部脳神経外科

²⁾ 昭和大学藤が丘病院脳神経外科

(2018 年 11 月 12 日受付 2018 年 12 月 28 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10682

Fig. 1 Preoperative images

- A : Computed tomography scan on admission, showing thick subarachnoid hemorrhage.
- B : Three-dimensional (3D) CT angiography, revealing neither an aneurysm nor any other vascular abnormality at left vertebral artery or posterior inferior cerebellar artery (PICA) (white circle).
- C : Left vertebral angiogram, disclosing a saccular aneurysm (⊃) on the distal PICA slowly stained by pooled contrast medium.
- D : 3D digital subtraction angiogram, clearly demonstrating a saccular aneurysm (⊃) on the lateral medullary segment of PICA.

Fig. 2 Operative views

- A : Intraoperative view, showing thick hematoma (●) on the left posterior inferior cerebellar artery (PICA) (◎) (*; medulla oblongata, ☆; bilateral tonsile)
- B : Intraoperative view after proximal trapping of the left PICA, and end to side bypass of the left occipital artery (OA) (★) to the distal PICA (◎), showing bleeding from the left PICA under the removed clot (●). (*; medulla oblongata, ☆; bilateral tonsile)
- C : Magnified intraoperative view after trapping of the left PICA (◎), disclosing the laceration (⊃) on the vessel wall of the trapped PICA (◎). (★; OA)

ロールを行った。左 VA の PICA 起始部を末梢に辿ると、左 PICA の AMS から LMS に黒褐色の硬い血腫が付着しており (Fig. 2A)、この部分に出血点が含まれていると考え、出血点を含み trap し、それより末梢部の caudal loop に OA-PICA bypass を置いた。出血点近くの血腫を除去すると、PICA の LMS の血管壁に laceration を認め、同部を出血点と判断した (Fig. 2B, C)。破裂した穿孔部の対側壁からは脳幹への穿通枝が出ており、穿通枝からの逆流と考えられる緩徐な出血を認めたため、

破裂部に clip を追加し止血した。脳腫脹が残存していたため、外減圧の状態で閉創し手術終了とした。

術後、GCS: E1VTM4、プロポフォールにて鎮静し、人工呼吸器管理とした。術翌日の頭部 MRI で左橋梗塞および脳梁膝部と脳梁膨大部に脳挫傷を認めた (Fig. 3)。術後 day3 の脳血管撮影では、仮性動脈瘤の消失と、OA からの良好な bypass flow を認めた (Fig. 4)。Day6 に脳浮腫による脳圧亢進症状を来したため、脳室ドレナージ術を追加したが、細菌性髄膜炎を生じたため

Fig. 3 Postoperative MR images
Hyperintense lesions are seen in the left pons (A) and genu and splenium of corpus callosum (B) on axial DW images.

全身状態悪化し、day 10 に永眠された。

考 察

PICA は、AICA と共に、胎生 8~11 週の時期に、第四脳室内の脈絡叢に終わる動脈として識別できるようになり、延髄周囲の血管は叢状形態をとる⁴⁾。やがて血管網は PICA や AICA の本幹のみとなり、これ以外の構造物は退縮する。この血管網が存在した PICA 本幹は脆弱であり、動脈瘤の発生母地になりうると考えられている^{4, 5)}。外傷に関連しない sporadic な PICA An の発生頻度は 0.5~3% とされ¹⁾、好発部位は、Lister らの分類⁶⁾で、telovelotonsillar segment TTS (43.9%) から cortical segment CS (23.6%) の血管分枝のない屈曲部に多いとされており^{2, 7)}、また、鵜殿らの報告では、PICA に生じる動脈瘤は、63 例中 47 例 (74.6%) が左側に存在していた⁸⁾。また、PICA の一側の欠損が 4~20% 存在し、一側から 2 本の PICA が出現する例も 0.9~6% にみられる¹⁾。一側のみの PICA の症例では、対側 PICA 領域への hemodynamic stress が加わり、これにより血管内皮細胞の炎症が惹起され、動脈瘤の発生に関係している可能

性があると考えられている⁹⁾。本症例でも、左 PICA は左 AICA に比して血管径が太く、対側 PICA 領域への血流も供給していたため、hemodynamic stress は他の小脳血管に比べ増加しており、炎症による脆弱性が存在していた可能性が示唆された。一方、外傷を契機とした PICA pseudo An は、自験例を含め 12 例 (Table 1) と非常に稀である^{10, 11)}。内訳は、男性 7 例、女性 5 例、年齢 16~65 歳 (32±17.1 歳) であり、外傷に関連しない sporadic な PICA An 症例に比べ若年に多い傾向にあり、AMS から LMS に多く発生していた。過去の報告では、AMS から tonsilomedullary segment (TMS) にかけては脳幹への穿通枝があるため、PICA が脳幹へ固定されており、そこに外傷による力が加わることにより脳幹周囲の PICA の損傷が生じやすいと考えられている^{12, 13)}。これに加え、前述した発生学的要因ならびに血行力学的要因と、さらに本症例の場合、左 PICA が VA の硬膜貫通直後から分枝 (PICA の分岐部は extracranial かつ intradural) していることにより椎骨動脈が牽引され、血管損傷による pseudo An を生じたと推察される。Traumatic pseudo An は、初回の脳血管撮影では約半数が特定困難であり、外傷後数日して特定される場合が多い。本症例を含めた過去の報告でも、受傷当日に診断に至ったケースは 3 例のみである。本症例では、受傷 6 時間後の脳血管撮影で左 PICA AMS から LMS にかけての範囲にゆっくり造影され、静脈相まで pooling する瘤状の血管外への造影剤貯留を認めたため、仮性動脈瘤と判断した。Yasui らや Weller による traumatic PICA An の組織学的検討によれば、仮性動脈瘤壁では動脈壁の 3 層構造全てが欠如しており、出血部の周囲に繊維素析出を認めるのみで、真性動脈瘤壁に生じる内膜肥厚や中膜変性、弾性板の菲薄化は生じないとされている^{14, 15)}。出血例の pseudo An は、真性脳動脈瘤よりも血管壁が脆弱なため、再破裂の可能性が非常に高いことが知られており⁹⁾、早期再破裂

Fig. 4 Postoperative angiography images
A : The left external carotid angiogram, showing good patency of occipital artery-posterior inferior cerebellar artery bypass.
B, C : The left vertebral angiogram, demonstrating the extinction of the aneurysm.

Table 1 Clinical profiles of previously reported case with non-penetrating injury related pseudoaneurysms of the posterior inferior cerebellar artery (PICA)

Author	Age	Sex	Side	PICA segment	Trauma	Conscious level on admission	CT findings on admission	Interval between trauma and aneurysm detection (days)	Treatment	GOS
Wortzman et al. (1980)	56	F	Rt.	CS	Traffic accident	Disoriented	Linear skull fracture	9	Resection	2
Meguro et al. (1985)	54	M	Rt.	LMS	Traffic accident	Comatose	Fracture to the clivus; IVH	6	Trapping and excision	4
Morald et al. (1991)	31	M	Rt.	CS	Fall down	Comatose	Cont, SAH, IVH	N/A	Clip	5
Teitelbaum et al. (1995)	22	F	Lt.	TMS	Biopsy	Somnolent	SAH	13	Coil	5
Schuster et al. (1999)	22	M	Rt.	AMS	Assault	3T	SHA, IVH	0	PA clip, lig	4
	16	M	Rt.	AMS	Baseball	3T	SAH, IVH	3	PA clip, lig	3
	33	F	Lt.	LMS	Horse accident	7T	SAH, IVH	0	Clip	3
Chiba et al. (2002)	48	F	Rt.	CS	Unidentified	Semicomatose	IVH	50	Cesection	5
Aronson et al. (2008)	65	M	Lt.	PMA	Unknown	Nausea	SAH	N/A	Resection	5
Purgina et al. (2015)	22	M	Lt.	AMS	Battery	7T	SAH, IVH	7	None	1
Lee et al. (2016)	55	F	Rt.	CS	Slip down	3T	SAH, Cont	30	Resection	5
Our case (2016)	35	M	Lt.	LMS	Assault	13	SAH, IVH	0	Trapping, bypass	1

PICA: posterior inferior cerebellar artery, GCS: Glasgow Coma Scale, GOS: Glasgow Outcome Scale, AMS: anterior medullary segment, LMS: lateral medullary segment, TMS: tonsilomedullary segment, CS: cortical segment, Esci: escision, lig: ligation, byp: bypass, PA: parent artery

予防が重要と考える。また、AMS～TMS には脳幹への穿通枝が存在しているため⁶⁾、可及的に血腫を除去し破裂部位周囲の穿通枝をよく確認することが重要となる。バイパスを併用したトラッピングにより、動脈瘤の近傍から分枝する穿通枝を可能な限り温存し、脳幹梗塞の予防に努める必要がある¹⁶⁾。しかし、トラッピング部位に穿通枝が存在している場合は、周術期の脳幹梗塞を見越し、脳保護薬や脳圧コントロールなどの管理が必要と考える¹⁶⁾。

結 語

外傷を契機として SAH を発症した PICA pseudo An を経験した。同疾患は、本症例を含め過去に 12 例の報告があるのみで、稀な疾患である。さらに本症例のように受傷当日に診断されることは非常に稀であるが、治療が遅れると致死となるため、外傷性 SAH の鑑別診断の一つとして PICA pseudo An も念頭に置く必要があると思われる。

本論文の要旨は、第 75 回脳神経外科学会学術総会に

おいて発表した。

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) 姉川繁敬, 林 隆士, 鳥越隆一郎ら: 破裂末梢性後下小脳動脈瘤—自験例 13 例 14 個の分析. *Neurol Surg* 29: 121–129, 2001
- 2) 鎌田喜太郎, 笹岡保典, 中上由美子ら: 末梢性後下小脳動脈瘤の検討. *脳卒中の外* 22: 277–284, 1994
- 3) 杉山達也, 水谷 徹, 鷺見賢司ら: Mid-lateral suboccipital approach による椎骨動脈瘤トラッピング術—特に distal end の攻略について—. *脳卒中の外* 44: 461–468, 2016
- 4) Margolis MT, Newton TH: The posterior inferior cerebellar artery. In Newton TH, Potts DG (eds): *Radiology of the skull and brain, Angiography Vol 2*. St. Louis, CV Mosby, 1974, pp1710–1774
- 5) Hudgins RJ, Day AL, Quisling RG, et al: Aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery. A clinical and anatomical analysis. *J Neurosurg* 58: 381–387, 1983
- 6) Lister JR, Rhoton AL, Matsushima T, et al: Microsurgical anatomy of the posterior inferior cerebellar artery. *Neurosurgery* 10:

- 170–199, 1982
- 7) Mitsos AP, Corkill RA, Lalloo S, et al: Idiopathic aneurysms of distal cerebellar arteries: endovascular treatment after rupture. *Neuroradiology* 50: 161–170, 2008
 - 8) 鷗殿弘貴, 白石哲也, 辻 武寿ら: 真の“PICA communicating artery” aneurysm の 1 例. *Neurol Surg* 25: 763–766, 1997
 - 9) 片岡大治: 未破裂脳動脈瘤の破裂のメカニズムと破裂予防. *脳神外ジャーナル* 22: 778–785, 2013
 - 10) deSouza RM, Shah M, Koumellis P, et al: Subarachnoid haemorrhage secondary to traumatic intracranial aneurysm of the posterior cerebral circulation: case series and literature review. *Acta Neurochir* 158: 1731–1740, 2016
 - 11) Lee SH, Moon JU, Choi SK, et al: Pseudoaneurysm at the distal posterior inferior cerebellar artery after blunt head trauma: A case report and review of the literature. *World Neurosurg* 92: 580. e1–e4, 2016
 - 12) Farag AM, Franks A, Gee DJ: Simple laboratory experiments to replicate some of the stresses on vertebro-basilar arterial walls. An investigation of possible mechanisms of traumatic subarachnoid haemorrhage. *Forensic Sci Int* 38: 275–284, 1988
 - 13) Dowling G, Curry B: Traumatic basal subarachnoid hemorrhage. report of six cases and review of the literature. *Am J Forensic Med Pathol* 9: 23–31, 1988
 - 14) Yasui T, Komiyama M, Nishikawa M, et al: Fusiform vertebral artery aneurysms as a cause of dissecting aneurysms. Report of two autopsy cases and a review of the literature. *J Neurosurg* 91: 139–144, 1999
 - 15) Weller RO: Spontaneous intracranial hemorrhage. In Adams JH, Duchen LW, eds. *Greenfield's Neuropathology*. 5th ed. London, Edward-Arnold, 1992, 269–301
 - 16) 中村道夫, 和泉允基, 宮崎 格ら: 出血で発症した末梢性後下小脳動脈瘤への外科的治療戦略. *脳卒中の外* 45: 464–470, 2017

Abstract

Traumatic posterior inferior cerebellar artery pseudoaneurysm treated by trapping and OA-PICA bypass: A Case Report

Yu Sakamoto, M.D.,¹⁾ Tohru Mizutani, Ph.D.,¹⁾ Tatsuya Sugiyama, Ph.D.,¹⁾
Katsuyoshi Shimizu, Ph.D.,¹⁾ and Takahito Nakajo, Ph.D.²⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Showa University School of Medicine

²⁾Department of Neurosurgery, Showa University Fujigaoka Hospital

Traumatic pseudoaneurysms of the posterior inferior cerebellar artery (PICA) are rare. Here we report a pseudoaneurysm developed on the PICA after blunt head injury. A 35-year-old man hit the back of his head on the wall in a fight, and was admitted to our hospital. The computed tomography (CT) showed subarachnoid haemorrhage (SAH) at the foramen magna and an intraventricular hematoma accompanied by an acute hydrocephalus. 3D-CT angiography on admission did not show any aneurysm or other vascular abnormality. However, the left vertebral angiogram (Lt. VAG), 6 h after injury, revealed a saccular aneurysmal formation on the PICA slowly stained by pooled contrast medium, indicating a pseudoaneurysm. The patient underwent trapping and occipital artery-PICA (OA-PICA) bypass through a midlateral suboccipital approach. The bleeding point was identified as the laceration on the vessel wall of the lateral medullary segment of PICA surrounded by thick hematoma. Thus, the diagnosis was a pseudoaneurysm caused by the blunt head injury. Although the development of a traumatic pseudoaneurysm is usually delayed, this suggested that a pseudoaneurysm could be a different diagnosis of an acute traumatic SAH.

Key words: PICA aneurysm, trauma, pseudoaneurysm, OA-PICA bypass

(Jpn J Stroke 41: 510–514, 2019)