◆ 症例報告 ◆

両側 infraoptic course of anterior cerebral artery に
多数の破格を伴った内頸動脈瘤の 1 例

高井 洋樹¹⁾ 松原 俊二¹⁾ 木下 景太¹⁾ 宮崎 裕子¹⁾ 船橋 卯¹⁾
南 祐佳里¹⁾ 平井 聡¹⁾ 原 慶次郎¹⁾ 八木 謙次¹⁾ 宇野 昌明¹⁾

要旨: 【目的】多数の破格を合併した internal carotid-infraoptic course of anterior cerebral artery (IC-IOA) 分岐部動脈瘤症例を報告する。【症例】37 歳女性。頭痛精査の頭部 MRI で右内頸動脈瘤、脳血管撮影で両側 IOA と、その血管と右内頸動脈分岐部に動脈瘤を認めた。他に plexiform of anterior communicating artery complex と bihemispheric anterior cerebral artery, 外頸動脈からの眼動脈描出, 左後頭動脈の内頸動脈分岐, 両側椎骨動脈の非典型的走行を認めた。また、脳梁は軽度形成不全であった。脳動脈瘤に対しステント支援下コイル塞栓術を施行したが、本血管は温存され、合併症はなかった。【結語】本疾患は破格を合併することが多く、詳細な画像読影が必要と考えられた。

Key words: carotid-anterior cerebral artery anastomosis, infraoptic course of ACA, aneurysm, embolization

はじめに

Infraoptic course of anterior cerebral artery (IOA) は、他に carotid-anterior cerebral artery (ACA) anastomosis と呼ばれ、1959 年に Robinson が剖検例で報告している¹⁾。この破格は内頸動脈眼動脈分岐部付近から分岐し、同側視神経下面から両側視神経間を上行する血管が anterior communicating artery (Acom) 付近に合流する非常に稀なものである。Uchino らは 5491 例の MRA を評価し、3 例 (0.086%) に IOA を認めたと報告し²⁾、Yi らは過去 64 例の報告をレビューし、発生側は右側 70%、左側 10%、両側 20%であったとしている³⁾。

今回、多数の破格を合併した internal carotid-infraoptic course of anterior cerebral artery (IC-IOA) 分岐部動脈瘤に対してステント支援下コイル塞栓術を施行した 1 症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：37 歳女性

現病歴：頭痛のため近医を受診し、精査目的に頭部 MRI を撮影したところ、右前床突起近傍内頸動脈瘤を指摘され当院を紹介受診となった。当院で再度頭部 MRI と血管撮影を施行したところ、両側内頸動脈眼動脈分岐部付近から分岐し、同側視神経下面から両側視神経間を上行し、前交通動脈に合流する血管 (IOA) を認めた (Fig. 1A-D)。また、この血管と右内頸動脈分岐部に最大径 6.7 mm、ネック 3.8 mm の内向き動脈瘤を認めた (Fig. 1D, E)。動脈瘤は前床突起と同じ高さであり、ネックは dural ring 近傍と考えられた。しかしドームは内向きで、かつ MRI にて動脈瘤周囲に髄液と同じ信号を認めたので、動脈瘤の大部分は硬膜内の可能性があると考えられた (Fig. 1F)。他の頭蓋内血管の破格として、前交通動脈に 4 カ所の窓形成と、それから起始する bi-hemispheric ACA (Fig. 2A, B)、両側中硬膜動脈から涙腺動脈を介して眼動脈への流入を認めた (Fig. 2C, D)。頭蓋外血管の破格として、右椎骨動脈は C3 椎体で横突孔に入り、かつ C1-C2 椎体間から硬膜内に貫通していた (Fig. 3A, B)。左椎骨動脈は、鎖骨下動脈から起始する以外にも大動脈から起始しており、いわゆる dual origin を形成していた (Fig. 3C)。また、同血管は C5 椎体レベルで横突孔に入っており (Fig. 3D)、左後頭動脈は頸部内頸動脈から起始していた (Fig. 3E)。その他にも軽度脳梁形成不全を合併していた (Fig. 4A, B)。

患者の治療希望もあり、破裂予防目的で全身麻酔下に

¹⁾川崎医科大学脳神経外科

責任著者：〒701-0192 岡山県倉敷市松島 577

川崎医科大学脳神経外科 高井洋樹

E-mail: greenhousesouvaioasus@yahoo.co.jp

(2020 年 8 月 13 日受付, 2020 年 9 月 27 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10852

Fig. 1 Infraoptic course of the anterior cerebral artery and aneurysm

A: Left ICAG (internal carotid angiogram) under contralateral carotid artery compression shows a right ICA aneurysm and bilateral IOAs (black arrows).

B: MRI (T2WI coronal) shows bilateral IOAs (black arrows) passing under the optic nerves (white arrows).

C: Left ICA angiography shows the IOA branched from the medial part of the carotid siphon (white arrow). The root of this artery is slightly dilated.

D: 3D rotational angiography with right ICA injection demonstrates the IC-IOA aneurysm on the inferomedial projection (white arrow).

E: 3D rotational angiography of right ICA injection demonstrates the IC-IOA aneurysm with a maximum diameter of 6.7 mm.

F: MRI (T2WI coronal) detects the aneurysm (white arrow) surrounded by the cerebral spinal fluid (white arrowheads).

Fig. 2 Intracranial vascular variations

A: Left ICA angiography demonstrates a bihemispheric ACA (black dotted arrow).

B: Schema showing the angioarchitecture and the variations, including four fenestrations at the Acom complex (black closed arrows), bilateral A2 (black open arrows), and a bihemispheric ACA (black dotted arrow).

C: Right ICA angiography does not show the ophthalmic artery arising from the internal carotid artery.

D: Right external carotid artery angiography demonstrates delayed filling of the ophthalmic artery opacified from the lacrimal artery anastomosed from the middle meningeal artery (black open arrows).

Retinal blush is noted (black closed arrow). A similar finding is also found on the left side.

ステント支援下のコイル塞栓術を行う方針とした。手術7日前から抗血小板薬2剤の内服を開始し、7Fr ROADMASTER(グッドマン, 愛知)を右内頸動脈(第2頸椎レベル)に留置した。Headway21(テルモ, 東京)を右中大脳動脈に、Excelsior SL-10(Stryker, Kalamazoo, MI, USA)を瘤内に誘導し、Low-profile Visualized Intraluminal Support(LVIS)ステント3.5×22 mm(テルモ)を展開した。GALAXY G3 4 mm×12 cm(Johnson & Johnson, New Brunswick, NJ, USA)を留置し、さらにGALAXY G3 3.5 mm×7.5 cmを追加した。この際、Excelsior SL-10がkick backし、コイルの一部は瘤外に留置された。この時点で体積塞栓率22.6%であった。軽度body fillingを

認めたが、瘤内の造影剤がpoolingしていたことから手術を終了した。最終造影でIOAは温存されている(Fig. 5A, B)。術後経過は良好で神経脱落所見は認めなかった。術後8カ月時点で再発は認めていない。また、本投稿にあたっては患者自身の同意を得ている。

考 察

— Terminology について —

IOAは胎生期の血管の遺残とされ、3つの仮説がある。(1)内頸動脈の分岐として出現するprimitive dorsal ophthalmic arteryとprimitive ventral arteryが吻合し、anastomotic loopを形成する説。(2)ophthalmic arteryの prechi-

Fig. 3 Extracranial vascular variations

- A: 3DRA demonstrates that the right vertebral artery enters the transverse foramen at C3 (black arrow).
 B: Right VA angiography shows the VA penetrating the dura mater between the C1 and C2 levels (white arrow).
 C: Left VA angiography shows the dual origin of the VA from the left subclavian artery (black arrow) and from the aortic arch (black arrowheads).
 D: Left VA angiography shows that this artery enters the transverse foramen at C5 (white arrow).
 E: Left ICA angiography shows the occipital artery originating from the ICA (black arrow).

Fig. 4 Dysplasia of the corpus callosum

- A, B: MRI (T1WI coronal and sagittal) shows mild corpus callosum dysplasia (white arrow).

asmal branch, 内頸動脈の superior hypophyseal branch, 前大脳動脈の chiasmal branch により構成される prechiasmal artery anastomosis が遺残する説, (3) primitive maxillary artery と primitive olfactory artery が anastomosis を形成し遺残する説である⁴⁾.

Robinson が最初に剖検例で IOA を報告した際には同側の A1 が欠損していた¹⁾. しかし, その後に同側 A1 が存在する IOA の報告があることから, Nutik らは carotid-ACA anastomosis という用語を提唱している⁵⁾. また, Yi らも, 本血管の破格は形態学的には IOA ではあ

Fig. 5 Postoperative angiography

- A: Right ICA angiography after coil embolization demonstrates near-occlusion of the aneurysm with preservation of the IOA (white arrow).
 B: The live image shows the coil mass and the stent markers of both ends (black arrows). The coil tail is placed beyond the neck line as the jailing microcatheter is kicked back during delivery (white arrow).

るが, この血管が遺残血管であることから, 発生学的には carotid-ACA anastomosis が相応しいとしている³⁾. 本症例は本血管分岐部に動脈瘤が発生していることから, 形態学的な名称である IOA を用いている.

—血管の破格について—

IOA には A1 低形成以外にもさまざまな破格を伴いやすいことが報告されている. 中硬膜動脈, 中大脳動脈か

らの眼動脈分岐, 内頸動脈低形成ないし無形成, 三叉神経動脈, plexiform of Acom complex をはじめとするさまざまな血管の窓形成や重複血管, coarctation of aorta, azygos ACA, さらにモヤモヤ病や動静脈奇形合併などが報告されている⁶⁾。

我々が渉猟しえた範囲内では, 本症例と同様に中硬膜動脈から眼動脈が分岐する症例は6例^{1, 3, 5, 7-9)}で, 本症例と同様に third A2(bihemispheric ACA)を認めたのは1例のみであった²⁾。両側性 IOA の症例で両側とも中硬膜動脈から眼動脈が分岐するのは2例目⁹⁾であり, 更に third A2 を認めた報告は初めてである。本症例では脳血管撮影を詳細に検討し, 中硬膜動脈由来の眼動脈や bihemispheric ACA だけでなく, 多数の血管の破格を同定できた。

—脳梁形成不全について—

IOA は, 血管以外の奇形合併として, 先天性頭蓋骨異形成および全身性骨異常を伴う症例, 右無眼球症, 右下顎骨無形成, 口唇口蓋裂を伴う症例と脳回形成異常症例¹⁰⁾の3例の報告がある。本症例でも観察された軽度脳梁形成不全と IOA は関連しているのかもしれないが, それらが胚の単一の発達障害に起因するのか, または一方の異常がもう一方の発達に影響したのかは不明である。脳梁形成不全合併は渉猟し得た範囲では初めての報告である。

—脳動脈瘤について—

本血管自体は無症状ではあるが, 脳動脈瘤合併率が非常に高いとされている。Yi らの報告では, 64 例中 31 例 (48%) に脳動脈瘤を認め, 部位として前交通動脈瘤は 16 例, ACA 瘤は 8 例, 多発動脈瘤は 4 例であったとしており³⁾, 前交通動脈付近に非常に動脈瘤が形成されやすいとされる。原因としては hemodynamic stress が考えられるが, その他に, 中大脳動脈, 内頸動脈先端部や脳底動脈などさまざまな部位の動脈瘤が報告³⁾されている。しかし, 過去の報告ではくも膜下出血発症が多いことから選択バイアスがあり, また, Uchino らが 5491 例の MRA を検討して特定した 3 例の IOA 患者では脳動脈瘤を認めなかった²⁾ことから, 実際の脳動脈瘤合併率はそこまで高くないと思われる。

過去に IOA 合併動脈瘤に対して血管内治療を施行した症例は 6 例報告されている。IOA と母血管との吻合部動脈瘤は 3 例のみであったが, それらは全て遠位側に存在する前交通動脈瘤であった。本症例のように IOA の近位端に形成された動脈瘤の報告は渉猟した限りでは過去に 1 例のみであり¹¹⁾, 非常に稀な部位と思われた。

また, ステンント支援下で治療した症例は過去に 2 例の

みであった^{3, 7, 12-15)} (Table 1)。

本症例で術前議論になったのは, IOA が塞栓術の際に閉塞しても問題ないかという点であった。術前の DSA で右眼動脈は右中硬膜動脈から還流があること, また IOA 血管自体が非常に低形成で, 同側 A1 がよく発達していることから, 閉塞は可能と判断した。しかし, 過去に非常に発達した IOA の症例で穿通枝を認めたという報告¹⁶⁾があることや, 意図的に閉塞をしたという症例報告が渉猟した限りないことから, どのような合併症が出現するのかは未知であった。今回は IOA ごと閉塞するつもりで塞栓術に臨んだが, 結果的には IOA が温存された。この問題については, 今後の症例研究に期待したい。

結 語

IC-IOA 動脈瘤にステント支援下コイル塞栓術を施行した 1 例を経験した。本疾患は脳動脈瘤や破格を伴うことが多いため, 手術対象になる患者には術前により詳細な画像読影を行う必要があると考えられた。

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) Robinson LR: An unusual human anterior cerebral artery. *J Anat* 93: 131-133, 1959
- 2) Uchino A, Saito N, Okada Y, et al: Carotid-anterior cerebral artery anastomosis on MR angiography: a university hospital-based study. *Neuroradiology* 54: 13-18, 2012
- 3) Yi Z, Sasaki T, Satoh D, et al: Carotid-anterior cerebral artery anastomosis associated with paraclinoid aneurysm and ophthalmic artery originating from middle meningeal artery: case report and consideration of terminology. *World Neurosurg* 88: 689 e1-e4, 2016
- 4) 竹下幹彦, 久保長生, 恩田英明ら: Infraoptic Course of ACA with Aneurysm の 1 例. *Neurol Surg* 19: 871-876, 1991
- 5) Nutik S, Dilenge D: Carotid-anterior cerebral artery anastomosis. Case report. *J Neurosurg* 44: 378-382, 1976
- 6) Turkoglu E, Arat A, Patel N, et al: Anterior communicating artery aneurysm associated with an infraoptic course of anterior cerebral artery and rare variant of the persistent trigeminal artery: a case report and literature review. *Clin Neurol Neurosurg* 113: 335-340, 2011
- 7) Akiyama Y, Okada T, Hayashi N, et al: Infraoptic course of the anterior cerebral artery originating from the extradural internal carotid artery associated with contralateral internal carotid artery agenesis and multiple intracerebral aneurysms. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 50: 984-987, 2010
- 8) Matsuura K, Uchino A, Saito N, et al: Carotid-anterior cerebral artery (ACA) anastomosis associated with azygos ACA and ophthalmic artery arising from the middle meningeal artery: a case report. *Surg Radiol Anat* 42: 211-214, 2020

Table 1 Review of the literature on endovascular treatment for aneurysms involving the infraoptic course of ACA

No	Author & Year	Age & Sex	Location of aneurym	Other anomaly	Onset	Side of infraoptic A1	Treatment	Contralateral supra optic A1
1	Hillard VH, et al ¹²⁾ (2002)	30F	Acom	Not stated	SAH	Right	Coil embolization	Present
2	Al-Qahtani S, et al ¹³⁾ (2003)	11M	Acom	Not stated	SAH	Right	Coil embolization	Present
3	Akiyama Y, et al ⁷⁾ (2010)	63F	MCA BA	Right retinal artery supplied by ECA Absent of left ICA Left MCA arising from BA Absent of left A1	SAH	Right	BA: Coil embolization MCA: Surgery	Absent
4	Kang HJ, et al ¹⁴⁾ (2012)	59 F	Acom	Azygos ACA Agenesis of left ICA Left MCA arising from BA	SAH	Right	Stent-assisted coil embolization	Absent
5	Yi Z, et al ³⁾ (2016)	78 F	IC-Paraclinoid	Ophthalmic artery originating from MMA	SAH	Right	Balloon-assisted coil embolization	Absent
6	Mahajan A, et al ¹⁵⁾ (2020)	62M	A2	Double fenestration of proximal A2	Unruptured	Left	Stent-assisted coil embolization	Absent
7	Our case (2020)	37F	IC-Paraclinoid	Plexiform of Acom Bihemispheric ACA Bilateral retinal arteries supplied by ECAs Atypical course of right vertebral artery Dual origin of left vertebral artery entering the C5 transverse foramen left occipital artery arising from ICA Mild dysplasia of corpus callosum	Unruptured	Bilateral	Stent-assisted coil embolization	Present

Acom: anterior communicating artery, BA: basilar artery, IC: internal carotid, ECA: external carotid artery, MCA: middle cerebral artery, MMA: middle meningeal artery, SAH: subarachnoid hemorrhage

- 9) Uchino A, Saito N, Yamane F: Bilateral carotid-anterior cerebral artery anastomoses associated with bilateral ophthalmic arteries arising from the middle meningeal arteries diagnosed by magnetic resonance angiography: a case report. *Surg Radiol Anat* 39: 1289–1292, 2017
- 10) McLaughlin N, Bojanowski MW: Infraoptic course of anterior cerebral arteries associated with abnormal gyral segmentation. Case report. *J Neurosurg* 107: 430–434, 2007
- 11) Handa J, Matsuda M, Koyama T, et al: Internal carotid aneurysm associated with multiple anomalies of cerebral arteries. *Neuroradiology* 2: 230–233, 1971
- 12) Hillard VH, Musunuru K, Nwagwu C, et al: Treatment of an anterior communicating artery aneurysm through an anomalous anastomosis from the cavernous internal carotid artery. *J Neurosurg* 97: 1432–1435, 2002
- 13) Al-Qahtani S, Tampieri D, Brassard R, et al: Coil embolization of an aneurysm associated with an infraoptic anterior cerebral artery in a child. *AJNR Am J Neuroradiol* 24: 990–991, 2003
- 14) Kang HJ, Lee YS, Suh SJ, et al: A ruptured aneurysm at the infraoptic azygous anterior cerebral artery with the contralateral internal carotid artery agenesis treated by Y-stent assisted coil embolization. *J Cerebrovasc Endovasc Neurosurg* 14: 237–242, 2012
- 15) Mahajan A, Banga V, Chatterjee A, et al: Infraoptic course of anterior cerebral artery coexistence with double fenestration of proximal A2 segment of anterior cerebral artery with associated dysplastic anterior communicating artery aneurysm treated with stent-assisted coiling. *Asian J Neurosurg* 15: 247–249, 2020
- 16) Senter HJ, Miller DJ: Inter optic course of the anterior cerebral artery associated with anterior cerebral artery aneurysm. Case report. *J Neurosurg* 56: 302–304, 1982

Abstract

Internal carotid aneurysm with multiple variations in the bilateral infraoptic course of the anterior cerebral artery: a case report

Hiroki Takai, M.D.,¹⁾ Shunji Matsubara, M.D., Ph.D.,¹⁾ Keita Kinoshita, M.D.,¹⁾
 Yuko Miyazaki, M.D.,¹⁾ Shigeru Funabashi, M.D.,¹⁾ Yukari Minami, M.D.,¹⁾ Satoshi Hirai, M.D.,¹⁾
 Keijiro Hara, M.D., Ph.D.,¹⁾ Kenji Yagi, M.D., Ph.D.,¹⁾ and Masaaki Uno, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Kawasaki Medical School

Objective: A case of an internal carotid-infraoptic (IC-IOA) course of an anterior cerebral artery aneurysm with multiple cerebrovascular variations is reported. **Case Presentation:** A 37-year-old woman who presented with headache was referred by a local doctor to our institution. Magnetic resonance imaging (MRI) showed a paraclinoid internal carotid artery aneurysm on the right side. The angiography, however, showed small bilateral infraoptic arteries (IOAs) and the right IC-IOA aneurysm with a maximum diameter of 6.7 mm. Several arterial variations also coexisted, such as a plexiform anterior communicating artery complex leading to a bihemispheric anterior cerebral artery (ACA), bilateral ophthalmic arteries exclusively supplied by the external carotid arteries, atypical courses of bilateral vertebral arteries, and the left occipital artery arising from the IC artery. Moreover, her corpus callosum appeared mildly dysplastic on MRI. Stent-assisted coil embolization for the aneurysm with preservation of the vessel was successfully performed. **Conclusion:** Since this relatively rare aneurysm tends to have many variations, detailed reading of images might be of great importance, particularly prior to treatment.

Key words: carotid-anterior cerebral artery anastomosis, infraoptic course of ACA, aneurysm, embolization

(Jpn J Stroke 43: 354–359, 2021)