◆ 症例報告 ◆

Artery of Percheron の解離に伴い視床梗塞を発症し、
その後くも膜下出血を呈した 1 例

中瀬 孝¹⁾ 善本 晴子¹⁾ 渋谷 聡²⁾ 平山 雅啓¹⁾ 田中 聡¹⁾ 佐藤 光¹⁾
石田 敦士¹⁾ 加藤 正高¹⁾ 白水 秀樹¹⁾ 朝来野佳三¹⁾ 松尾 成吾¹⁾

要旨：症例は 28 歳女性。一過性の複視が出現し左視床梗塞を認めた。脳血管造影検査にて右 P1 から分岐する紡錘状に拡張する血管を確認した。Artery of Percheron (AOP) 解離との診断は難しく、虚血発症であり、再発予防としてアスピリンの投与を開始して経過観察していた。しかし、投与開始 1 カ月後にくも膜下出血を発症し、アスピリンが AOP 解離からの出血を惹起した可能性を考えた。本症例は、短期間に虚血およびくも膜下出血を来したこと、また、紡錘状拡張の退縮傾向を認めたことから、その病態は AOP の解離性病変であることが強く示唆された。アスピリンによりくも膜下出血が惹起されたと考えられ、痛恨の症例であったが、極めて稀な症例であり、文献的考察を加え報告する。

Key words: artery of Percheron dissection, cerebral infarction, subarachnoid hemorrhage

はじめに

後大脳動脈 P1 より分岐し視床内側部を灌流する傍正中視床動脈の anatomical variant があることが知られているが、片側の P1 から両側視床を支配する artery of Percheron (AOP) もその一つである。AOP が原因血管と思われる脳梗塞や、くも膜下出血の症例報告は少数ながら報告されている¹⁻⁵⁾。今回我々は、AOP の解離に伴い脳梗塞を発症し、その後にくも膜下出血を呈した症例を経験した。本症例は、脳梗塞後に投与開始したアスピリンにより解離からの出血を惹起した可能性が考えられ、痛恨の症例であるものの、極めて稀な症例であり報告する。

症 例

患者：28 歳，女性

主訴：複視

既往歴：特記事項なし，内服薬：なし

現病歴：某年 9 月下旬(第 1 病日)昼から、複視と軽度の左眼瞼下垂を自覚し当院を受診した。

入院時現症：身長 159.0 cm，体重 52 kg，体温 36.0℃，
血圧 102/70 mmHg，脈拍 90/分・整

入院時身体所見：意識清明，脳神経系では瞳孔不同なし，両側対光反射迅速，僅かな左眼瞼下垂，僅かな左眼球運動障害を認めた。他の脳神経症状や四肢の運動障害や感覚障害，小脳症状は認めなかった。

入院時検査所見：血液検査にて明らかな異常所見なし(プロテイン C 活性，プロテイン S 活性，AT-III，甲状腺機能，抗核抗体，自己抗体，補体値を含めて明らかな異常値なし)。

入院時画像所見：頭部 MRI にて左視床傍正中部の梗塞像，MR angiography (MRA) にて右 P1 から分岐する紡錘状に拡張した血管を認めた (Fig. 1)。

入院後経過：第 2 病日には症状はほぼ消失した。心臓超音波検査，ホルター心電図，血液検査にて特記所見なし。脳血管造影検査では，右 P1 からの紡錘状に拡張する血管を認めたものの，左視床への穿通枝の描出ははっきりせず，拡張する血管が AOP かどうかは不明であった (Fig. 2)。虚血発症であり，紡錘状拡張は脳梗塞とは反対側であることから，AOP 閉塞の脳梗塞とは考えにくく，左右いずれかの P1 から直接分岐する左傍正中視床動脈閉塞による脳梗塞と考えられた。また，慎重な経

¹⁾ 森山記念病院脳神経外科

²⁾ 森山記念病院脳神経内科

責任著者：〒134-0081 東京都江戸川区北葛西 4-3-1

社会医療法人社団森山医会森山記念病院脳神経外科 中瀬 孝

E-mail: ko-nakase-628@hotmail.com

(2021 年 3 月 8 日受付，2021 年 4 月 1 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10910

Fig. 1 第1回目入院時MRI DWI(A, B)とMRA(C, D)
A, B: DWI 水平断と冠状断にて左傍正中視床梗塞像を認めた。
C, D: MRA では、右 P1 から分岐する紡錘状拡張した血管(矢印)を認めた。

過観察の上で紡錘状拡張血管の拡大傾向がみられなかったこともふまえ、病態を解離性病変とは断定できず、脳卒中ガイドラインに沿って再発予防にアスピリン 100 mg の投与を開始して加療を行い、第 11 病日に神経脱落症状なく自宅退院した。

退院後 25 日目(第 36 病日)に突然の後頭部痛、嘔吐にて当院を救急受診した。頭部 CT にて脳底槽に高吸収域を認め、くも膜下出血を認めた。頭部 MRA にて右 P1 から起始する紡錘状拡張血管の残存を認め、脳梗塞後にくも膜下出血を発症していることから、AOP の脳動脈解離が出血源である可能性と、解離性病変であり、アスピリンが出血を惹起した可能性が考えられた(Fig. 3)。アスピリンの中止、降圧安静、保存的加療を行い、再入院 23 日目(第 59 病日)に施行した脳血管造影では形状に特に変化はみられなかった(Fig. 3)。再入院 25 日目(第 61 病日)に、特に神経脱落症状なく自宅退院となり、外来にて画像のフォローアップとなった。退院後 59 日目(第 120 病日)、MRA にて AOP の紡錘状拡張に消退傾向がみられており、AOP の解離が強く疑われた(Fig. 4)。

本論文の発表に関して、患者から同意を得ている。

Fig. 2 第1回目入院中の血管造影検査と3D-DSA(A, B: 正面像, C, D: 側面像)
正面像(A, B): 右 P1 より紡錘状拡張する血管(矢印)を認めたが、左傍正中視床動脈の抽出ははっきりしない。右 P1 はやや急勾配に走行し、右 SCA duplication を認める。
側面像(C, D): 右 P1 から紡錘状拡張する血管(矢印)を認めた。

考 察

AOP による脳卒中の症例報告は、両側の傍正中視床に及ぶ梗塞像とともに診断されることが多く¹⁻⁴⁾、血管像のみから AOP と診断するのは難しい。そのため、典型的な梗塞像でない場合に、AOP による脳卒中と診断するのは難しいと考えられる。

AOP について、P1 から分岐する傍正中視床動脈の variant は Type I から Type III に分類されるが、その中で Type IIb に分類され、片側の P1 より分岐する共通幹より両側視床と中脳に栄養する動脈が AOP である¹⁾。

AOP の診断において、脳底動脈の分岐(basilar bifurcation)の分類が有用と考えられる⁶⁾。Basilar bifurcation の形成において、発生学的にまず、第 1 大動脈弓より、primitive internal carotid artery(ICA)と primitive trigeminal artery(PTA)が分岐し、その後、longitudinal neural artery(LNA)が形成される。ICA より cranial division と caudal division が分岐されると、LNA は主に PTA より血流を供給される。そして ICA の caudal division と LNA が吻合すると両側の LNA が癒合し、脳底動脈(BA)の形成が始まり、PTA 等の原始吻合が退縮していく。その原始吻合の退縮時期により basilar bifurcation が大きく 3 つの

Fig. 3 第2回目入院時の画像所見

頭部 CT(A)：脳底槽に高吸収域，SAH を認める。
MRA(B)，3D-DSA(C)：AOP の紡錘状拡張(矢印)を認める。

Fig. 4 MRA の経時的変化

第2回目入院時(A：第36病日)，第68，120病日(B，C)のMRAにて紡錘状拡張の自然退縮(矢印)を認めた。

variant に分類される⁷⁾。その中の asymmetrical caudal fusion において，cranial fusion 側の P1 より AOP の分岐が多いとされる⁷⁾。

一方，superior cerebellar artery (SCA) の variation についての報告は，SCA の重複動脈や起始部によって 5 type に分類できる⁸⁾。片側の SCA duplication は約 3～28% 程度の頻度であるが，左右差や SCA 起始部の位置における有意差は認められなかったとの報告があり⁸⁾，anatomical variant と考えられる。その報告では，SCA variant と basilar bifurcation との関係性についての言及はなく，SCA の variation によって basilar bifurcation の分類や AOP を診断することは難しいと考えられる。

本症例において，右 P1 は左 P1 と比較して急勾配であり (Fig. 2)，右 P1 が cranial fusion とも見え，basilar bifurcation が asymmetrical caudal fusion の可能性がある，としか判断できないと考えられた。しかし，SCA の variation と AOP との明らかな関係性はみられていないものの，本症例では SCA duplication を認めており (Fig. 2)，右 AOP 梗塞の症例報告で右 SCA duplication を認めている症例が報告されている点は³⁾非常に興味深い

と考えられた。

AOP による脳卒中において，AOP variant は全人口の約 4～12% にみられるとされ²⁾，AOP 閉塞による脳梗塞は稀で，全脳梗塞の約 0.1～2% である³⁾。AOP 閉塞による脳梗塞の典型的画像所見として，両側傍正中視床の梗塞像に加えて，中脳吻側部が 43%，中脳病変のないものが 38%，視床前核部と中脳病変を含むものが 14%，視床前核部のみ含むものが 5% であった²⁾。AOP 領域の梗塞に関する症例報告は散見されてはいるものの，病態や治療法に関しては controversial であり，緊急性が高いとされる中脳を伴う病変であれば rt-PA による血栓溶解療法やヘパリンによる抗凝固療法を検討し，緊急性が高くないとされる中脳病変の伴わないものには経口抗凝固療法とリハビリを検討するとされているが，病態によっては抗血小板薬も検討する必要がある，とする報告もある⁴⁾。早期治療を開始するためにも，AOP の脳梗塞は診断が遅れる傾向にあるため鑑別にあけて早期に診断して治療すべきだと考えられている。

一方，AOP の脳動脈瘤破裂によるくも膜下出血もしくは出血性病変は極めて稀であるが，出血発症であれば

再破裂するリスクが高いとも考えられ、治療法として血管内治療が選択肢に挙げられるとする報告もある⁵⁾。血管内治療の方法についても、AOP が傍正中視床と中脳に栄養していることや、動脈瘤の先端より AOP が分岐している複雑な形状であることから、coiling での閉塞術ではリスクが高いと考えられ、flow diverter で時間をかけての血栓化を狙った治療法を行ったという報告はある⁵⁾。しかし、flow diverter による治療法は適応外であると考えられることや、動脈瘤の閉塞は得られたものの、術後の頭部 CT にて両側傍正中視床部の脳梗塞像がみられることもあり⁵⁾、慎重に判断する必要がある。

今回我々は、右 P1 から起始する紡錘状拡張を伴う血管とともに左側視床梗塞像がみられ、さらに脳梗塞後にくも膜下出血を発症したものの、保存的加療と慎重な経過観察にて再出血を起こすことなく経過した稀な症例を経験した。また、経過からは AOP の解離性病変が疑われた。

本症例の病態と治療法について、一般的に動脈瘤の伴う脳動脈解離にアスピリンは勧められないが⁹⁾、本症例では、右 P1 より分岐する AOP 閉塞の脳梗塞として典型的な画像所見ではなく、右 P1 から分岐し紡錘状に拡張している血管とは反対側である左視床のみの脳梗塞像であり、また、左傍正中視床動脈の抽出が明らかではなかったこともあり、AOP による脳梗塞とは考えにくかった。左右いずれかの P1 から直接分岐する左傍正中視床動脈の閉塞による脳梗塞と考えられたため、紡錘状に拡張した血管が原因血管、または解離性病変とは断定できず、また注意深い経過観察にて紡錘状拡張の形状に変化を認めなかったことも加えて、再発予防の観点から抗血小板薬治療を行った。しかし、その後にくも膜下出血を発症し、経過から、紡錘状に拡張した血管が AOP の脳動脈解離であることと、解離性病変でありアスピリンが出血を惹起した可能性が疑われた。脳梗塞の病態も AOP の解離性病変により部分的な脳梗塞像を来した可能性が考えられた。従って、極めて稀と思われたが AOP の脳動脈解離と診断し、保存的加療を選択して慎重に経過観察を行ったところ、再破裂することなく幸いにも神経脱落症状を残すことなく退院となった。更には、外来での画像フォローアップにおいて、紡錘状拡張の自然退縮を認めており、AOP の脳動脈解離であったことが強く推察された。本症例は、左傍正中視床動脈の脳梗塞と右傍正中視床動脈の解離が同時に発生した可能性が完全には否定できないものの、右 AOP の本幹に解離が生じ、その末梢の左視床への枝が脳梗塞となったと考えた方が一元的で可能性が高いと思われた。つまり、

AOP の解離と脳梗塞が発生し、その後にくも膜下出血を発症した非常に稀な症例と考えられた。

AOP の脳動脈解離については、我々が渉猟し得た範囲では報告がなく、非常に稀な病態と思われる。そのため、脳動脈解離という病態と診断できず、アスピリンにより出血が惹起された可能性が考えられる痛恨の症例を経験した。結論として、basilar bifurcation が asymmetrical caudal fusion の可能性があること、今回の SCA variant と同様に右 SCA duplication を伴う AOP 梗塞の症例報告があること、病態としては、紡錘状拡張とは反対側の部分的な脳梗塞と考えられ、AOP 閉塞による脳梗塞の典型的な画像所見ではなかったこと、脳梗塞後にくも膜下出血を発症したこと、アスピリンが出血を惹起した可能性があること、保存的加療により再出血することなく経過したこと、紡錘状に拡張した血管は自然退縮したこと、以上より、痛恨の症例ではあるものの、非常に稀な AOP の解離性病変である可能性が強く示唆され、症例報告した。

結 語

AOP の脳動脈解離が病態と考えられる脳梗塞にアスピリンを開始したことにより、くも膜下出血を惹起した痛恨の症例を経験した。経過から、病態として AOP の解離性病変が示唆され、非常に稀な症例と思われた。また、AOP の脳動脈解離という病態によって片側の視床梗塞やくも膜下出血を発症する可能性も考えられた。今後も慎重なフォローアップを行うとともに、更なる AOP の解離性病変についての報告を待ちたい。

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) Kheiralla OAM: Artery of Percheron infarction a rare anatomical variant and a diagnostic challenge: Case report. Radiol Case Rep 16: 22–29, 2021
- 2) Lazzaro NA, Wright B, Castillo M, et al: Artery of percheron infarction: imaging patterns and clinical spectrum. AJNR Am J Neuroradiol 31: 1283–1289, 2010
- 3) Lamot U, Ribaric I, Popovic KS: Artery of Percheron infarction: review of literature with a case report. Radiol Oncol 49: 141–146, 2015
- 4) Kichloo A, Jamal SM, Zain EA, et al: Artery of Percheron infarction: a short review. J Investig Med High Impact Case Rep 7: 2324709619867355, 2019 doi: 10.1177/2324709619867355
- 5) Sparacia G, Agnello F, Midiri M, et al: A rare case of ruptured aneurysm of the paramedian artery of Percheron. Interv Neuroradiol 24: 509–512, 2018
- 6) Campos C, Churojana A, Rodesch G, et al: Basilar tip aneu-

rysms and basilar tip anatomy. Interv Neuroradiol 4: 121–125, 1998

- 7) 松原俊二：椎骨脳底動脈系の発生，解剖，バリエーション. Niche Neuro-Angiology Conference 2018 http://nnac.umin.jp/nnac/NNAC2018_files/7.%20%E6%9D%BE%E5%8E%9F.pdf (アクセス日：2021 年 2 月 20 日)

8) Krzyżewski RM, Stachura MK, Stachura AM, et al: Variations and morphometric analysis of the proximal segment of the superior cerebellar artery. Neurol Neurochir Pol 48: 229–235, 2014

9) 日本脳卒中学会 脳卒中ガイドライン委員会編集：脳卒中治療ガイドライン 2015. 東京，協和企画，2015

Abstract

Thalamic infarction and subarachnoid hemorrhage due to artery of Percheron dissection

Ko Nakase, M.D.,¹⁾ Haruko Yoshimoto, M.D.,¹⁾ Satoshi Shibuya, M.D., Ph.D.,²⁾ Masahiro Hirayama, M.D.,¹⁾ Satoshi Tanaka, M.D.,¹⁾ Hikari Sato, M.D., Ph.D.,¹⁾ Atsushi Ishida, M.D., Ph.D.,¹⁾ Masataka Kato, M.D.,¹⁾ Hideki Shiramizu, M.D., Ph.D.,¹⁾ Keizo Asakuno, M.D., Ph.D.,¹⁾ and Seigo Matsuo, M.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Moriyama Memorial Hospital

²⁾Department of Neurology, Moriyama Memorial Hospital

A 28-year-old woman was admitted to our hospital with transient double vision. Head MRI and angiography revealed left thalamic infarction and fusiform dilatation of thalamic perforator originating from the right P1. It was difficult to diagnose it as AOP infarction, because AOP dissection should be really rare. Therefore, she started taking aspirin for prevention of recurrent ischemia, and was discharged with no symptom. Approximately one month later, she complained severe headache, and head CT revealed subarachnoid hemorrhage. Aspirin was suspected to exacerbate the AOP dissection and cause the hemorrhage. She stopped taking aspirin, and her blood pressure was kept low. Eventually, she was discharged with no neurological deficit, and the fusiform dilatation of AOP improved. The etiology was strongly suspected to be AOP dissection.

Key words: artery of Percheron dissection, cerebral infarction, subarachnoid hemorrhage