クモ膜下出血にて発症し多発性脳動脈瘤を合併した上矢状静脈洞血栓症の1治験例

佐々木 厚・永関 慶重・柿沢 敏之・佐々木秀夫・深町 彰・貫井 英明

Superior Sagittal Sinus Thrombosis complicated with Multiple Aneurysms presenting as Subarachnoid Hemorrhage

Case Report

Atsushi SASAKI, Yoshishige NAGASEKI, Toshiyuki KAKIZAWA, Hideo SASAKI, Akira FUKAMACHI and Hideaki NUKUI

Department of Neurosurgery, Yamanashi Medical College, Yamanashi

Abstract

A 48-year-old female suffered from severe headache, vomiting, and disturbance of consciousness. On admission, she was somnolent with mild paresis of the left leg. Precontrast computed tomography (CT) scans showed a high-density area in the left sylvian fissure and the posterior horn of the left lateral ventricle. Angiographically, a right middle cerebral artery aneurysm and a basilar artery aneurysm were recognized. Furthermore, on the venous phase of bilateral carotid angiograms, superior sagittal sinus (SSS) thrombosis was recognized. Subarachnoid hemorrhage (SAH) was probably induced by rupture of a dilated vein associated with SSS thrombosis, because high-density area on CT scan and location of the aneurysms were different. The patient was initially treated conservatively. Two months later, craniotomy was performed which did not disclose any trace of hemorrhage around the aneurysms and aneurysms themselves. Postoperatively, acute brain swelling and generalized convulsion were induced. The patient became ambulatory 5 months after surgery. In SAH cases, the venous phase should be examined at least in one side of the carotid arteries. In such a SAH case induced by venous thrombosis complicated by aneurysms it is very difficult to decide the timing of surgery for aneurysms.

Key words: superior sagittal sinus thrombosis, multiple aneurysms, subarachnoid hemorrhage, computed tomography

I はじめに

頭蓋内静脈洞血栓症は一般に頭蓋内圧亢進症状を呈するが、閉塞の範囲・部位・速度・側副血行路の程度などにより症状は多彩であり、出血性梗塞・脳内血腫・脳浮腫・クモ膜下出血を合併すると言われている。しかし、静脈洞血栓症のクモ膜下出血単独発症例はまれである。

今回我々は、クモ膜下出血にて発症した上矢状静脈洞血栓症に多発性脳動脈瘤を合併したまれな1例を経験したので、その病態、急性期の治療、および脳動脈瘤に対する手術時期に関して若干の考察を加え報告する。

II 症 例

＜患者＞ 48才、女性

山梨医科大学脳神経外科

Address reprint requests to: A. Sasaki, M.D., Department of Neurosurgery, Yamanashi Medical College, 1110 Shimokato, Tamaho-machi, Nakakoma-gun, Yamanashi 409-38.

受稿 1989年6月26日 受理 1990年5月15日

主訴：頭痛，嘔吐，意識障害

既往歴：高血圧以外に特記すべきことなし．経口避妊薬の服用なし．

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：1986年6月15日，突然の頭痛および意識障害にて発症したが，安静にて4日後には軽快した．1週間後，再び頭痛，嘔吐，意識障害(somnolence)が出現した．近医にて施行した腰椎穿刺で血性髄液が認められたためクモ膜下出血と診断され，同月23日当科に緊急入院となった．

入院時所見：体格中等度，栄養状態良好，体温37.3°C，血圧126/60 mmHg，脈拍66/分整であり，眼瞼結膜の軽度anemic 以外に異常はなかった．また耳鼻科的疾患の既往はなく，入院時に月経を認め妊娠の徴候はなかった．

意識はJapan Coma Scaleにて10，項部硬直，左下肢の筋力低下，および両側Babinski反射を認めた．うっ血乳頭は認められなかった．

血液検査では，赤血球 $387 \times 10^4/\mu\text{l}$ ，白血球 $9700/\mu\text{l}$ ，ヘモグロビン10.2 g/dl，ヘマトクリット31.1%，血小板 $163 \times 10^3/\mu\text{l}$ であり，生化学的検査では総蛋白6.0 g/dl，アルブミン3.4 g/dl，GOT 34 mIU，GPT 16 mIU，LDH 379 mIU，尿素窒素13 mg/dl，クレアチニン0.5 mg/dl，Na 139 mEq/l，K 4.3 mEq/l，Cl 108 mEq/l，グルコース205 mg/dlであった．また血液凝固系では，PT 14.1 sec，APTT 59.3 sec，フィブリノーゲン246.1 mg/dlであった．

神経放射線学的所見：頭蓋単純写では副鼻腔に異常所見はなかった．単純CTにて，左Sylvius裂および左側脳室後角に軽度の高吸収域を認めるも，右Sylvius裂には高吸

Fig. 1 Precontrast computed tomography (CT) scan on admission showing a slightly high-density area in the left sylvian fissure and posterior horn of the left lateral ventricle.

収域は認められなかった(Fig. 1)．また脳室は軽度拡大を示し，異常な低吸収域や正中偏位は認められなかった．脳血管撮影では，左内頸動脈領域には動脈瘤や動静脈奇形(AVM)を認めなかった．右内頸動脈撮影では右中大脳動脈分岐部に外側へ突出する 5×10 mmの動脈瘤を認め(Fig. 2A)，静脈相においては上矢状静脈洞前半部の描出は不良であり，sylvian veinおよびsphenoparietal sinusは拡張蛇行し，側副血行路として発達した所見が認められた．また多数のらせん状のcortical veinを認めた(Fig. 2B)．左椎骨動脈撮影にて，径10 mmの脳底動脈瘤を認めた(Fig. 2C)．

入院後経過：以上より，上矢状静脈洞血栓症および多発

Fig. 2 A: Right internal carotid angiogram showing a saccular aneurysm at the trifurcation of the right middle cerebral artery. B: Right internal carotid angiogram, venous phase of the lateral view. The anterior portion of the superior sagittal sinus is poorly opacified. The sylvian vein and the sphenoparietal sinus are dilated as a collateral circulation and many corkscrew-like vessels are seen. C: Left vertebral angiogram showing a saccular aneurysm at the basilar-left posterior cerebral artery junction.

性脳動脈瘤と診断した。今回の出血源に関しては、CT 上高吸収域の認められた左中大脳動脈領域に動脈瘤や AVM を認めなかったため、静脈洞血栓症により側副血行路として拡張した cortical vein の破綻によるクモ膜下出血と推定した。血栓症の進行程度が予測できなかったため動脈瘤に対する根治術は行わず、高張利尿剤、副腎皮質ホルモン、抗痙攣剤および抗生物質による保存的治療により臨床経過を観察した。その結果、入院 3 日後に意識はほぼ清明となり、11 日後の CT にて両側 Sylvius 裂および脳溝の描出を認めた。第 21・53 病日に行った脳血管撮影静脈相 (IA-DSA) では、入院時とほぼ同様の所見であった。なお経過中、血液凝固能の亢進所見は認められなかった。発症 2 ヶ月後には左下肢の筋力低下は改善し、独歩可能となった。この時点の CT では脳溝や Sylvius 裂の描出は良好で、頭蓋内圧亢進所見は改善しており、8 月 28 日動脈瘤の破裂予防を目的とし右前頭側頭開頭による clipping 術を施行した。

手術所見：右 pterional approach にて手術を施行した。脳表の変色やクモ膜の肥厚は認められなかったが、sylvian vein および中小の cortical vein は著明な拡張・蛇行を呈していた (Fig. 3)。脳底動脈瘤、右中大脳動脈瘤の順に clipping を行った。両者とも動脈瘤は白色で、変色や bleb の存在は認められず、また周囲組織にも変色および癒着はなく、クモ膜下出血の所見は認められなかった。

術後経過：麻酔からの覚醒は不良で、術後 1 時間より右半身から全身に及ぶ jacksonian epilepsy が頻発したが、diazepam の持続点滴にて痙攣は control された。術後 6 日目より意識は清明となったが、新たに右動眼神経麻痺、右半身の軽度の運動および感覚障害が認められた。術後 6 日目の CT では、右側脳室は圧排され変形しており、Sylvius

Fig. 3 Intraoperative view of the surface of the right hemisphere. Sylvian veins and many tortuous small vessels are markedly dilated.

Fig. 4 Precontrast CT scan 6 days after surgery. The anterior horn of the right lateral ventricle is narrowed. The low-density areas are seen in the bilateral thalami and internal capsules.

裂や脳溝の描出は不良で、右大脳半球の軽度脳腫脹および両側基底核部の低吸収域を認めた (Fig. 4)。しかし、術後 2 ヶ月の CT では脳腫脹の所見は軽快し、その後の経過は良好であった。患者は、右不全片麻痺を残し、術後 226 日目、発症後第 293 日目の 1987 年 4 月 14 日にリハビリテーションを目的に転院となった。

III 考 察

上矢状静脈洞血栓症は血管撮影が普及する以前は主として剖検例での報告であったため、予後不良のまれな疾患と考えられていた⁴⁾。しかし、その後脳血管撮影の普及とともに症例数が増加し予後良好なものも認められるようになり、実際には以前言われていたほどまれな疾患ではないと考えられている⁹⁾。一方 Sekhar ら⁸⁾によると、全剖検例の 2~5% に脳動脈瘤が発見されており、脳動脈瘤自体まれな疾患ではないが、我々の症例でみられたような上矢状静脈洞血栓症と脳動脈瘤の合併はまれである。この両者の合併例は、我々の渉猟しえた範囲では Yasargil ら¹¹⁾の 1 例のみであった。しかし、Yasargil らの記載では、前交通動脈瘤破裂によるクモ膜下出血例にて剖検時に静脈洞血栓症の診断を得たものであり、その発症様式や生前における診断などの点においては自験例と類似の症例は見当らなかった。

自験例においては、突然の頭痛、嘔吐、意識障害で発症し、腰椎穿刺にて血性髄液が認められ、CT 上でもクモ膜下出血を示す所見が認められたため、当初は脳動脈瘤や AVM を疑い検索を進めた。その結果、右中大脳動脈および脳底動脈に動脈瘤を認め、同時に上矢状静脈洞血栓症を示す所見が得られ、多発性脳動脈瘤と上矢状静脈洞血栓症の合併例であることが確認された。この際出血源がどちらであるかが問題になったが、CT 上高吸収域が認められた

左 Sylvius 裂の領域には動脈瘤や AVM が認められないことより、上矢状静脈洞血栓症が脳血管へ波及し、側副血行路として拡張した cortical vein が破綻してクモ膜下出血を生じたものと推定した。CT 上明らかな異常は確認されなかったが、左下肢の筋力低下は venous congestion による右前頭葉内側部の障害によるものと考えられた。その後行われた脳動脈瘤に対する手術において脳動脈瘤が出血を生じた所見は認められず、この推定は正しいことが証明された。しかし、上矢状静脈洞血栓症は通常頭蓋内圧亢進症状や痙攣、片麻痺等の focal sign で発症することが多く⁶⁾、また出血を生ずる場合は出血性梗塞や脳内血腫の形をとることが多い^{2,7)}とされており、純粋なクモ膜下出血を示すことはまれであるため、手術前には脳動脈瘤から出血した可能性を完全に否定することはできなかった。いずれにせよ、頭蓋内圧亢進が存在し脳循環動態が著しく変化している時期に手術侵襲を加えることは患者の状態を悪化させる可能性が高いと判断し、発症急性期は保存的治療を行った。急性期には、頭蓋内圧亢進に対して高張利尿剤、副腎皮質ステロイド、抗痙攣剤、抗生物質の投与とともに厳重な血圧の管理を行いつつ、臨床症状および CT にて経過を観察した。抗凝固・線溶療法に対しては、治療成功例の報告^{1,3)}がある一方で、頭蓋内出血性病変による死亡例の報告⁵⁾もあり意見が分かれているが、自験例においては発症起点がクモ膜下出血のため anticoagulants や fibrinolytics は用いなかった。発症約 2.5 ヶ月後には臨床症状および CT 所見より、頭蓋内圧亢進症状が完全に消失した。この時期まで十分に手術を待機したにもかかわらず、術後急性脳腫脹や全身痙攣が出現したことは、本症の術後管理の困難さを示すと同時に、手術時期の判断が非常に難しいと考えられた。しかし、発症直後は保存的に対処し急性期手術を回避したことが、術後右半身麻痺を残したものの、救命につながったと思われる。術後両側基底核部に低吸収域が出現した原因に関しては、同部が前脈絡叢動脈の穿通枝領域であり、両側性に出現していることから、手術操作による直接的な損傷ではなく、静脈洞血栓症の深部への波及や脳圧亢進などによって静脈うっ滞の増強が起こり梗塞に至ったものと思われた。動眼神経麻痺は、脳底動脈瘤に対する術中操作によるものであると考えられた。

本例では、臨床症状および CT 上でクモ膜下出血の所見を呈し、脳血管撮影動脈相で動脈瘤を認めたが、静脈相まで連続撮影することにより静脈洞血栓症の診断が得られた。CT や MRI による静脈洞血栓症の診断例が多数報告されている^{2,7,10)}が、現在でも確定診断には脳血管撮影が必須であり、このことからクモ膜下出血の原因として本疾患もまれではあるが常に念頭に置き、頸動脈撮影におい

て少なくとも一側では静脈相まで撮影すべきと考えられる。

IV 結 語

クモ膜下出血にて発症した特発性上矢状静脈洞血栓症に多発性脳動脈瘤を合併したきわめてまれな 1 治験例を報告した。本症例におけるクモ膜下出血の原因は、検査および手術所見から、静脈洞血栓症が皮質静脈へ波及し静脈破綻をきたしたためと考えられた。静脈洞血栓症を合併した脳動脈瘤に対する手術時期の判断と術後管理は非常に難しいが、急性期手術は回避すべきであると思われる。また自験例の経験から、クモ膜下出血の症例では少なくとも一側の静脈相までの血管撮影を行う必要があると考えられる。

本論文の要旨は、第 25 回日本脳神経外科学会関東地方会(1987 年 2 月、東京)において発表した。

文 献

- 1) Bousser MG, Chiras J, Bories J, Castaigne P: Cerebral venous thrombosis: A review of 38 cases. *Stroke* 16: 199-213, 1985
- 2) Buonanno FS, Moody DM, Ball MR, Laster DW: Computed cranial tomographic findings in cerebral sino-venous occlusion. *J Comput Assist Tomogr* 2: 281-290, 1978
- 3) DiRocco C, Iannelli A, Leone G, Mischini M, Valori VM: Heparin-Urokinase treatment in a septic dural sinus thrombosis. *Arch Neurol* 38: 431-435, 1981
- 4) Ehlers H, Courville CB: Thrombosis of internal cerebral veins in infancy and childhood. Review of literature and report of five cases. *J Pediatr* 8: 600-623, 1936
- 5) Gettelfinger DM, Kokmen E: Superior sagittal sinus thrombosis. *Arch Neurol* 34: 2-6, 1977
- 6) Krakenbühl HA: Cerebral venous and sinus thrombosis. *Clin Neurosurg* 14: 1-24, 1967
- 7) Rao KCVG, Knipp HC, Wagner EJ: Computed tomographic findings in cerebral sinus and venous thrombosis. *Radiology* 140: 391-398, 1981
- 8) Sekhar LN, Heros RC: Origin, growth, and rupture of saccular aneurysms; a review. *Neurosurgery* 8: 248-260, 1981
- 9) Towbin A: The syndrome of latent cerebral venous thrombosis: Its frequency and relation to age and congestive heart failure. *Stroke* 4: 419-430, 1973
- 10) Wolfgang MB, Karl E, Sylvia HH, Thomas V, Manfred S, Dimitrios C: MR of venous sinus thrombosis: A case report. *AJNR* 8: 713-715, 1987
- 11) Yasargil MG, Damur M: Thrombosis of the cerebral veins and dural sinuses, in Newton TH, Potts DG (eds): *Radiology of the Skull and Brain*, vol 2. St Louis, CV Mosby, 1974, pp 2375-2400

[別刷請求先: 〒409-38 山梨県中巨摩郡玉穂町下河東1110, 山梨医科大学脳神経外科, 佐々木厚]