症 例

試験開頭にて確認しえた中大脳動脈末梢部 angiographically occult aneurysm の 1 例

小山 誠剛

Distal Middle Cerebral Artery Aneurysm Angiographically Negative and Verified by Exploratory Surgery: Case Report

Seigo KOYAMA, M.D.

Department of Neurological Surgery, Yokohama Chuou Hospital, Yokohama, Japan

Summary: A 51-year-old female was admitted complaining of headache and vomiting. On admission her consciousness was clear, and neurological examination showed no abnormality except for nuchal stiffness. Computed tomographic scans demonstrated subarachnoid hemorrhage (SAH) and a hematoma in the fronto-temporal lobe. However, cerebral angiography revealed neither aneurysmal shadow nor other causes of bleeding. On the day of admission, exploratory surgery was undertaken. Aneurysms or other vascular lesions were not found on the C₁ and C₂ of the internal carotid artery, M₁ and M₂ of the middle cerebral artery (MCA), and A₁ of the anterior cerebral artery, while a small mass 1 cm in diameter was found on a branch of the anterior temporal artery derived from the M₁ segment. Trapping of the feeding and draining vessels was performed and the mass was resected. Histopathologically the wall of the mass was lacking in the media and internal elastic lamina and was composed of lamina interna and adventitia. Inflammatory, tumorous and dissecting lesions were excluded. Postoperative course was uneventful, and the patient was discharged with no neurological deficits.

SAH of unknown etiology is thought to be benign lesions, while some of the patients diagnosed as SAH of unknown etiology occasionally present with rebleeding, and the prognosis is not always good. Exploratory surgery frequently delineates the cause of bleeding in those patients diagnosed as SAH of unknown etiology. However, it is very rare that the angiographically occult aneurysm is located on the peripheral branch of the distal MCA as it was in the present case. Exploratory surgery should be undertaken when aneurysms are suspected to be the cause of bleeding in those patients diagnosed as SAH of unknown etiology. And it is important to investigate not only the main trunk of the cerebral arteries but also the peripheral branches as extensively as possible in the exploratory surgery.

Key words:

- subarachnoid hemorrhage
- distal middle cerebral artery
- angiographically occult aneurysm

Surg Cereb Stroke

(Jpn) 29: 125-130, 2001

Fig. 1 Computed tomographic scan demonstrating subarachnoid hemorrhage and a hematoma in the right fronto-temporal lobe.

Fig. 2 Right internal carotid angiograms revealing no aneurysmal shadow.

はじめに

脳動脈瘤破裂によるくも膜下出血では、破裂後、なんらかの原因で、動脈瘤が血管撮影上認められない angiographically occult aneurysm が存在する。今回、出血にて発症し、血管撮影では出血源を確認できず、開頭にて前側頭動脈の分枝というまれな部位に angiographically occult aneurysm を認めた 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加え、報告する。

症 例

患 者：51 歳，女性。

主 訴：頭痛，嘔吐。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：3 年前より高血圧にて降圧剤を服用中。また，3 年前，肺癌 (T₁N₀M₀) にて右上葉切除術施行。

現病歴：1999 年 3 月 24 日，突然の頭痛，嘔吐が出現，26 日，近医を受診後，当科に入院した。

入院時現症：意識清明，項部硬直を認めるも，神経学的には異常を認めなかった。

Fig. 3 Intraoperative photograph (upper) showing a round mass on the small vessel which derived from the anterior temporal artery. Schematic drawing (lower)

神経放射線学的所見

頭部レントゲン撮影：異常を認めなかった。

頭部CT：右シルビウス裂を中心とするくも膜下出血および右前頭側頭葉に血腫形成を認めた (Fig. 1)。

脳血管撮影：右中大脳動脈の内側への偏位を認める以外に異常を認めなかった (Fig. 2)。

出血源を同定できなかったが、くも膜下出血がシルビウス裂に限局しており、血腫も伴っており、動脈瘤性の出血が強く疑われたため、入院同日、手術を施行した。

手術所見：右前頭側頭開頭を行った。右M₁、M₂およびその分岐部には動脈瘤などの血管病変は認められなかったが、右側頭葉内の血腫腔に接して径1 cm 弱の暗赤色の腫瘤を認めた (Fig. 3)。腫瘤の色調は均一で、壁在血栓を疑わせる所見はなかった。この腫瘤には、右M₁ bifurcationの直前で分岐する前側頭動脈と思われる血管からさらに分岐する細い血管が1本流入しており、その末梢からは同径の血管が1本流出し、側頭葉の先端方向へ走行していた。この血管をミニクリップで trapping したのち、切断、腫瘤を摘出した。

Fig. 4 Histological examination of the surgical specimen demonstrating that the internal elastic lamina is degenerated and interrupted at the entrance of the aneurysmal sac (arrow). AN: aneurysmal sac, PA: parent artery (Elastic-van Gieson stain, $\times 100$)

病理組織学的所見：腫瘤の大きさは7×5 mmで、腫瘤内は血腫で満たされていた。血管と腫瘤との移行部では内弾性板は消失しており、腫瘤壁では、内弾性板も中膜も認められず、腫瘤壁は薄い内膜と外膜よりなっていた (Fig. 4)。また、解離性動脈瘤にみられるような壁在血栓や pseudolumen は認めず、ヘモジデリンを貪食したマクロファージや炎症細胞、腫瘍細胞の浸潤も認められなかった。これらの所見より血栓化した真性動脈瘤と診断した。

考 察

中大脳動脈末梢部動脈瘤の臨床症候

中大脳動脈末梢部動脈瘤の発生頻度については全脳動脈瘤の0.4-2%²⁹⁾³⁶⁾⁴¹⁾、全中大脳動脈瘤の22-10%⁹⁾²⁹⁾³⁶⁾⁴¹⁾を占める。原因として外傷、感染、腫瘍、もやもや病あるいは解離性のものを除外した、いわゆる先天性のもので詳細な記述のあるものは、自験例を含め22例の報告がある²⁾⁴⁾⁷⁾¹²⁾¹⁶⁾¹⁹⁻²³⁾²⁵⁻²⁷⁾³²⁾³⁴⁾³⁸⁾。平均年齢は36.3歳と通常の動脈瘤に比べ若く、男女比は10:12と性差はみられない。症状は22例中16例が出血で発症しているが、出血で発症した16例中、くも膜下出血のみのものは1例だけで、8例は脳内あるいはシルビウス裂内の血腫を伴っており、3例は脳内出血のみで発症している。破裂中大脳動脈瘤では41%と他の部位の動脈瘤に比べ高率に血腫を伴う²⁹⁾が、中大脳動脈末梢部動脈瘤でも22例中11例(50%)と高率に血腫を伴う傾向が認められる。破裂中大脳動脈瘤では、その0.5-7.9%に硬膜下血腫を合併するが¹⁾³⁵⁾、部位については、Fox⁶⁾によると内頸動脈が43%と最も多く、ついで中大脳動脈に22%が発生している。一方、中大脳動脈末梢部動

Table 1 Frequency and location of angiographically occult aneurysm verified by exploratory surgery

Author (Year)	Number of aneurysms verified by exploratory surgery / Number of angiographically occult aneurysms explored by surgery	Location of verified aneurysm
Sakaki <i>et al.</i> (1979)	4 / 5 (80%)	AcomA 3 MCA 1
Kaneko (1987)	29/37 (78%)	—
Jafar <i>et al.</i> (1993)	5/6 (83%)	AcomA 4 MCA 1
Tatter <i>et al.</i> (1995)	7/9 (78%)	AcomA 3 ICPC 1 MCA 2 VA-PICA 1
Hashimoto <i>et al.</i> (1995)	3/6 (50%)	AcomA 2 MCA 1

AcomA = anterior communicating artery, ICPC = internal carotid-posterior communicating artery, MCA = middle cerebral artery, VA-PICA = vertebral artery-posterior inferior cerebellar artery

Table 2 Features of 56 angiographically occult aneurysms found by exploratory surgery

Microaneurysm	19
Small aneurysm	20
Partially or completely thrombosed	12
Location	
AcomA	17
MCA	8
ICPC	1
VA-PICA	1

脈瘤では 22 例中 4 例 (18%) が、硬膜下血腫で発症しているが、いずれも皮質動脈の小型の動脈瘤である。皮質動脈の走行するくも膜下腔は狭く、動脈瘤が直接硬膜下に露出していたり、くも膜に接するように存在するためくも膜と癒着を生じやすく、出血が容易に硬膜下に広がりやすいと考えられる。中大脳動脈末梢部動脈瘤の発生部位については、発生部位の明らかな 21 例についてみると、insula 10 例、operculum 4 例、cortex 7 例で、insula と cortex に多かった。

治療に関しては、22 例中 21 例で、外科的治療が行われている。このうち 8 例は clipping のみ、4 例は clipping 後に切除を行っている。他の 9 例では、通常の clipping が困難なため、trapping や血行再建術を併用した術式が用いられている。血行再建が行われた 4 例^{19) 22) 23)}では、切斷端同志を直接、あるいは浅側頭動脈を移植して吻合したり^{19) 23)}、動脈瘤遠位の血管断端を別の中大脳動脈分枝や浅側頭動脈に吻合する方法^{19) 22)}が用いられているが、4 例中 1 例で術中の血行遮断によると考えられる虚血症状が術後に出現している。一方、血行再建を行わずに trapping を行った 5 例では、1 例にのみ術後に虚血症状を認めている。どのような場合に血行遮断が可能なのか、あるいは血行再建が必要なのかを適確に知る方法はないが、Drake³⁾は親動脈の遮断後、動脈瘤を穿刺し、出血が多ければ側副血行は十分であり虚血症状をきたすことはないとして述べている。中大脳動脈末梢部の脳血流に関しては、側副血行により血行遮断の影響は出にくいと考えられ、本症例でも、動脈瘤から流出する血管を切斷したさい、かなりの逆行性の出血を認めたため血行再建は行わなかった。しかし、虚血

症状の防止に万全を期すためには、M₂、M₃ に遮断が及ぶような場合には、なんらかの血行再建を行う必要がある¹⁹⁾ものと思われる。

Angiographically occult aneurysm

くも膜下出血の中には、血管撮影で出血源が不明のもの、いわゆる SAH of unknown etiology と呼ばれているものが存在する。その頻度については 3.8-18.8% と報告されている^{10) 15) 30) 37)}。初回の血管撮影では 4-18.9% で出血源が認められないが^{11) 24) 31) 33) 37) 42)}、その後 2 回目あるいは 3 回目の血管撮影で、それらの 11.7-33% とかなり高率に出血源が確認される^{11) 13) 18) 24) 37) 42)}。SAH of unknown etiology は予後良好であるとの報告もあるが^{5) 8) 37) 42)}、再出血に関しては、1 例もなかったとする報告³⁷⁾から、27% に再出血を認めたという報告¹⁵⁾までであるが、多くは 5-10 数% に再出血を認めたと報告されている^{5) 8) 13) 14) 39)}。また、死亡率については 4.8-16.2% と報告されており^{5) 15) 42)}、必ずしも予後良好とはいえない。SAH of unknown etiology のなかには、van Gijn⁴⁰⁾が提唱した nonaneurysmal perimesencephalic subarachnoid hemorrhage (NP-SAH)、すなわち、中脳周辺にくも膜下出血が限局する予後の良好な一群が存在し、その頻度に関しては、SAH of unknown etiology の 31-68% を占める^{11) 17) 28)}。CT 上、NP-SAH 型の出血を呈するものは、ウィリス輪前半部の破裂動脈瘤でみられることはなく¹⁷⁾、一方、SAH of unknown etiology と診断されたもののなかには、CT 上、non-NP-SAH 型の出血を呈するものが多く含まれる^{17) 18) 42)}。SAH of unknown etiology の予後に関して報告ごとによらつきが

あるのは、予後良好な NP-SAH 群がどの程度含まれているかにより結果が左右されるためと考えられ、SAH of unknown etiology の診断にさいしては、その治療方針の決定とも関連して両者を厳密に区別して扱う必要がある。このように、SAH of unknown etiology と診断されたもののなかには、non-NP-SAH 型の出血を呈する、必ずしも予後良好でない一群が含まれており、angiographically occult aneurysm がその原因の一部をなしている可能性があるものと推測される。

SAH of unknown etiology と診断された場合、保存的加療が行われることが多いようであるが、試験開頭に関してもいくつかの報告がなされている (Table 1)。金子¹⁵⁾は、SAH of unknown etiology と診断された 55 例のうち 37 例に試験開頭を行い、29 例に出血源と考えられる動脈瘤を認め、うち 13 例は 2-3 mm の小型の動脈瘤で clipping を行ったが、11 例は小型丘状隆起で clipping 不能で coating に終わったと報告している。Tatter ら³⁰⁾は、血管撮影で出血源の確認できなかった 40 例のうち 9 例に試験開頭を行い 7 例で出血源を確認したが、そのうちの 3 例はいずれも 4 mm 以下の小動脈瘤で clipping を行ったが、4 例は clipping 困難な微小動脈瘤で wrapping のみを行ったと報告している。他の試験開頭に関する報告でも、いずれもきわめて高率に出血源が確認されている (Table 1)。しかし、それらの大部分は、金子や Tatter らが報告したのと同様に、小型あるいは微小動脈瘤で、通常の clipping が必ずしも可能ではなく、coating などに止めざるを得なかったものが多い。また、部分的に血栓化しているものが多く、なかには自然治癒とも考えられる完全に血栓化していた例も報告されている³³⁾。局在については、記載のある 27 個の動脈瘤のうち 17 個 (63%) が AcomA の動脈瘤であった。このように、試験開頭で発見される動脈瘤は、通常の破裂動脈瘤とは異なる特徴を有しており (Table 2)、その自然経過も、また、通常の破裂動脈瘤とは違うのかもしれない。しかし、これら試験開頭で発見される小ないし微小動脈瘤の自然経過が不明であり、また、SAH of unknown etiology の原因として他に確認されたものはなく、これらが SAH of unknown etiology の再出血の原因である可能性は十分推測される。したがって、1) non-NP-SAH 型の出血を呈し、動脈瘤性の出血が強く疑われ、2) 出血が大脳縦裂部やシルビウス裂に限局するような場合には、試験開頭を考慮すべきと考える。また、試験開頭にさいしては、本症例のように本幹から離れた細血管にも動脈瘤が存在することがあり、広範囲にわたる注意深い検索が必要である。

文 献

- 1) Bassett RC, Lemmen LJ: Subdural hematoma associated with bleeding intracranial aneurysm. *J Neurosurg* **9**: 443-450, 1952
- 2) Boop Jr. LWC, Chou SN, French LA: Ruptured intracranial aneurysm complicated by subdural hematoma. *J Neurosurg* **18**: 834-836, 1961
- 3) Drake CG: Giant intracranial aneurysms: experience with surgical treatment in 174 patients. *Clin Neurosurg* **26**: 12-95, 1979
- 4) Dupard T, Leys D, Lejeune JP, *et al*: Les anévrismes artériels intracrâniens distaux. A propos d'un cas d'anévrisme géant de l'artère du pli courbe. *Neurochirurgie* **33**: 51-56, 1987
- 5) Eskesen V, Sorensen E, Rosenorn J, *et al*: The prognosis in subarachnoid hemorrhage of unknown etiology. *J Neurosurg* **61**: 1029-1031, 1984
- 6) Fox JL: Intracranial Aneurysms, vol 1, New York, Springer, 1983, pp199-203
- 7) 藤村 幹, 関 博文, 菅原孝行, ほか: 壁内出血により発生した中大脳動脈分枝一血栓化紡錘状巨大動脈瘤の 1 例. *脳神経外科* **25**: 151-155, 1997
- 8) Giombini S, Bruzzone M, Pluchino F: Subarachnoid hemorrhage of unexplained cause. *Neurosurgery* **22**: 313-316, 1988
- 9) 原岡 襄, 鬼塚俊朗, 大岩泰之, ほか: 中大脳動脈末梢枝動脈瘤—非細菌性 10 例の臨床的検討. 第 17 回日本脳卒中学会抄録, 1992, p102
- 10) 橋本正明, 南出尚人, 得田和彦: 出血源不明のクモ膜下出血症例における急性期直達手術. *The Mt Fuji Workshop on CVD* **13**: 27-32, 1995
- 11) Iwanaga H, Wakai S, Ochiai C, *et al*: Ruptured cerebral aneurysms missed by initial angiographic study. *Neurosurgery* **27**: 45-51, 1990
- 12) 早川 勲, 杉山弘行, 柳橋万之, ほか: 急性硬膜下血腫として発症した乳児末梢性脳動脈瘤. *脳神経外科* **2**: 415-420, 1974
- 13) Jafar JJ, Weiner H: Surgery for angiographically occult cerebral aneurysms. *J Neurosurg* **79**: 674-679, 1993
- 14) Juul R, Fredriksen TA, Ringkjøb R: Prognosis in subarachnoid hemorrhage of unknown etiology. *J Neurosurg* **64**: 359-362, 1986
- 15) 金子満雄: SAH of unknown origin の診断と治療. *The Mt Fuji Workshop on CVD* **5**: 79-83, 1987
- 16) 川崎 隆, 小嶋康弘, 山本勇夫: 若年者中大脳動脈末梢部に発生した large aneurysm の 1 治験例. *脳卒中の外科* **26**: 356-360, 1998
- 17) 北原孝雄, 大和田隆, 常磐嘉一, ほか: 脳幹周囲脳槽に局限した出血を呈する出血源不明のくも膜下出血の臨床的検討. *脳神経* **21**: 903-908, 1993
- 18) 小松洋治, 安田 貢, 柴田智行, ほか: 初回脳血管撮影で出血原因不明のくも膜下出血症例の治療方針の検討. *脳神経外科* **22**: 43-49, 1994
- 19) Lee SY, Sekhar LN: Treatment of aneurysms by excision or trapping with arterial reimplantation or interpositional grafting. *J Neurosurg* **85**: 178-185, 1996
- 20) 馬淵正二, 上山博康, 井須豊彦: シルビウス裂内の濃厚な血腫で発症した破裂中大脳動脈遠位部動脈瘤の治療経験. *脳外誌* **4**: 30-40, 1995
- 21) Martin-Ferrer S: Hématome sous-dural aigu par rupture d'un anévrisme périphérique de l'artère sylvienne. *Neurochirurgie* **33**: 494-496, 1987
- 22) 松本 強, 山浦生也, 森村達夫, ほか: 被殻出血の像を示した末梢性中大脳動脈瘤の 1 例—診断上の pitfall—. *脳神経*

1) Bassett RC, Lemmen LJ: Subdural hematoma associated

- 44: 1133-1136, 1992
- 23) 宮城 潤, 重森 稔, 杉田保雄, ほか: 複雑部分発作を主訴とし, 瘤切除と親血管の端々吻合にて完治した巨大中大脳動脈瘤症例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **31**: 953-956, 1991
 - 24) 小笠原邦昭, 嘉山孝正, 桜井芳明, ほか: X線CTで診断されたくも膜下出血源の検討. *脳神経* **42**: 399-404, 1990
 - 25) 大槻宏和, 杉野正司, 岩城和男, ほか: 中大脳動脈末梢部動脈瘤を伴った症候群の1例. *脳神経外科* **12**: 983-985, 1984
 - 26) 岡 秀宏, 倉田 彰, 宮坂佳男, ほか: 術前診断が困難であった完全血栓性末梢性中大脳動脈瘤の1例. *脳神経外科* **22**: 677-680, 1994
 - 27) Rengachary S, Szymanski DC: Subdural hematomas of arterial origin. *Neurosurgery* **8**: 166-172, 1981
 - 28) Rinkel G, Wijndicks E, Hasen D, *et al*: Outcome in patients with subarachnoid haemorrhage and negative angiography according to pattern of haemorrhage on computed tomography. *Lancet* **338**: 964-968, 1991
 - 29) Rinne J, Hernesniemi J, Niskanen M, *et al*: Analysis of 561 patients with 690 middle cerebral artery aneurysms: anatomic and clinical features as correlated to management outcome. *Neurosurgery* **38**: 2-11, 1996
 - 30) Sakai N, Yamada H, Ando T, *et al*: Prevention of rebleeding after operation for subarachnoid hemorrhage of unknown cause. *Neurosurgery* **17**: 942-946, 1985
 - 31) 榊 寿右, 内海庄三郎, 菊池晴彦, ほか: クモ膜下出血症例の検討—特に出血源の検索と出血源不明例の臨床像について—. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **19**: 991-998, 1979
 - 32) Scott RM, Ballantine Jr. HT: Spontaneous thrombosis in a giant middle cerebral artery aneurysm. Case report. *J Neurosurg* **37**: 361-363, 1972
 - 33) 塩川芳昭, 斎藤 勇: 出血源不明のクモ膜下出血への対応—血管撮影で描出されない破裂脳動脈瘤の急性期手術—. *脳卒中の外科* **24**: 171-176, 1995
 - 34) Singh R: Peripheral middle cerebral arterial aneurysm. A case report. *Acta Neurochir* **18**: 278-281, 1968
 - 35) Strang RR, Tovi D, Hugoson R: Subdural hematomas resulting from the rupture of intracranial arterial aneurysms. *Acta Chir Scand* **121**: 345-350, 1961
 - 36) Suzuki J: Experience with 1000 directly operated cases. *Cerebral Aneurysms Tokyo, Neuron*, 1979, pp8-13
 - 37) Suzuki S, Kayama T, Sakurai Y, *et al*: Subarachnoid hemorrhage of unknown cause. *Neurosurgery* **21**: 310-313, 1987
 - 38) 竹本安範, 田中直樹, 服部恭久, ほか: Cyst形成を伴った中大脳動脈末梢部巨大動脈瘤の1例. *脳卒中の外科* **24**: 199-204, 1996
 - 39) Tatter SB, Crowell RM, Ogilvy CS: Aneurysmal and microaneurysmal angiogram-negative subarachnoid hemorrhage. *Neurosurgery* **37**: 48-55, 1995
 - 40) van Gijn J, van Dongen KJ, Vermeulen M, *et al*: Perimesencephalic hemorrhage: a non-aneurysmal and benign form of subarachnoid hemorrhage. *Neurology* **35**: 493-497, 1985
 - 41) Yaşargil MG: Middle cerebral artery aneurysms. *Microneurosurgery*, Stuttgart, George Thieme Verlag, 1984, vol 2, pp124-164
 - 42) 安井敏裕, 坂本博昭, 岸 廣成, ほか: 血管撮影にて異常を認めないくも膜下出血症例の治療方針. *脳神経外科* **25**: 907-912, 1997