非出血発症の解離性動脈瘤における臨床症状，画像の 長期観察による検討

加藤 祥一¹, 米田 浩¹, 石原 秀行¹, 野村 貞宏¹
梶原 浩司¹, 藤井 正美¹, 藤澤 博亮¹, 鈴木 倫保¹
柏木 史郎², 杉山 修一³

Long-term Follow-up Study of Non-hemorrhagic Dissecting Aneurysms: Clinical Outcome and Radiological Findings

Shoichi KATO, M.D.,¹ Hiroshi YONEDA, M.D.,¹ Hideyuki ISHIHARA, M.D.,¹
Sadahiro NOMURA, M.D.,¹ Koji KAJIWARA, M.D.,¹ Masami FUJII, M.D.,¹
Hirosuke FUJISAWA, M.D.,¹ Michiyasu SUZUKI, M.D.,¹ Shiro KASHIWAGI, M.D.,²
and Shuichi SUGIYAMA, M.D.³

¹Department of Neurosurgery, Yamaguchi University School of Medicine, ²Department of
Neurosurgery, Kurokawa Hospital, and ³Department of Neurosurgery, Konan Saint Hill
Hospital, Yamaguchi, Japan

Summary: To elucidate the natural clinical course and identify radiological changes of non-hemorrhagic dissecting aneurysm, we retrospectively reviewed the cases of 10 patients with non-hemorrhagic dissecting aneurysms. Their clinical course had been followed for 1 month to 11 years 7 months (mean: 3 years 2 months), and cerebral angiography and/or magnetic resonance (MR) angiography findings examined for 3 weeks to 10 years 1 month after initial onset. The site of the dissection involved 8 vertebral arteries, 1 internal carotid artery and 1 anterior cerebral artery. Initial symptoms were headache in 3 cases, headache with motor weakness in 2 cases, headache with dysarthria in 1 case, headache with dizziness in 1 case, and Wallenberg Syndrome in 1 case. The remaining 2 cases were diagnosed incidentally.

Following initial conservative treatment, intravascular treatment was performed in 2 cases whose dissecting aneurysms increased in size after 7 to 7.5 months. Follow-up symptoms were no symptoms in 8 cases, dizziness in 1 case and hypertensive intracerebral hemorrhage in 1 case. Serial cerebral angiograms and/or MR images showed radiological changes in 7 cases, observed from 1 month to 2 years 4 months after initial onset.

These findings suggest that initial conservative treatment resulted in relatively good clinical outcome in patients with non-hemorrhagic dissecting aneurysms, but surgical intervention should be performed when dissection increases. In addition, patients with non-hemorrhagic dissecting aneurysm should be carefully followed by cerebral and/or MR angiography until 1 or 2 years postonset.

Key words:

- dissecting aneurysm
- non-hemorrhage
- long-term follow up
- serial imaging
- radiological findings

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 33: 193-199, 2005

¹ 山口大学医学部 脳神経外科, ²黒川病院 脳神経外科, ³厚南セントヒル病院 脳神経外科(受稿日 2004. 8. 9) [連絡先: 〒755-8505 山口県宇部市南小串 1-1-1 山口大学医学部 脳神経外科 加藤 祥一] [Mailing address: Shoichi KATO, M.D., Department of Neurosurgery, Yamaguchi University School of Medicine, 1-1-1 Minamikogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan]

はじめに

解離性動脈瘤は椎骨動脈系に好発し、出血で発症する場合が多いとされている。最近では画像診断の発達に伴い非出血発症での解離性動脈瘤が診断されるようになってきたが、非出血例では報告例も少なく、自然経過も不明な点が多い^{1) 4) 5) 7)}。非出血例では出血例と比べ病態が異なるとされているため、その長期予後を知ることが治療方針を左右させる⁹⁾。われわれが経験した非出血発症の解離性椎骨動脈瘤症例の臨床症状、経過と転帰、および画像所見の長期観察について検討し、文献的考察を加えて報告する。

対象と方法

対象は1992年から2002年まで当院に入院した解離性動脈瘤は20例で、このうち非出血性解離性動脈瘤と診断された10症例を対象とした。解離性動脈瘤の診断は臨床症状、画像診断から行い、今回の検討では血管壁の解離(dissection)に伴い解離腔が動脈瘤様に拡張したもの、および解離に伴い狭窄性変化を生じたものを含めて検討した。性別は男性7例、女性3例で、年齢は23歳から73歳まで(平均49.8歳)であった。これらの症例について、初発症状、臨床経過、治療と転帰および脳血管造影あるいはmagnetic resonance imaging (MRI)、magnetic resonance angiography (MRA)による画像の長期変化について検討した。

結 果

1. 解離部位

解離性動脈瘤の発生部位は椎骨脳底動脈8例、内頸動脈1例、前大脳動脈1例であった(Table 1)。椎骨動脈例では解離部位は右側4例、左側4例であった。内頸動脈解離部位は左側であり、前大脳動脈解離は左側(A2 segment)で

あった。

2. 臨床症状

初発症状は頭痛のみが3例、頭痛を伴う麻痺が2例、頭痛と構音障害1例、頭痛とめまいが1例、Wallenberg症候群が1例、偶然に発見されたものは2例であった。MRIあるいはCTスキャンによる検査で梗塞巣を確認したのは4例だった。臨床症状の追跡観察期間は1カ月から11年7カ月(平均3年2カ月)で、8例は無症状、1例は軽度のめまい感が残存、1例は2年4カ月後に高血圧性脳出血(左被殻出血)により右片麻痺を生じた。

3. 治 療

当院では非出血性解離性動脈瘤の治療は1993年までは抗凝固療法を行っていたが、94年以降は正常血圧を維持する血圧管理を原則としている。症候性の8例では、診断時の治療の内訳は93年以前に入院した2症例ではオザグレル投与が1例、ヘパリン投与が1例に行われた。血圧管理のために降圧剤投与が3例に、頭痛や吐気に対する対症治療が3例であった。偶然に発見された2症例においては、症例6は心筋梗塞、心室性頻拍、高血圧に対して降圧剤、ワーファリンによる治療中に解離性動脈瘤が発見されたが、内服治療はそのまま続けた。2年4カ月後に高血圧性脳内出血(被殻出血)を生じたが解離部位には変化はなかった。偶然に発見された症例3は高血圧性脳出血(被殻出血)の検査時に椎骨動脈解離が発見され、降圧剤の投薬加療が行われた。

4. 画像所見

初回の脳血管造影あるいはMRAではpearl & string signが4例、pearl様拡張が1例、fusiform dilatationが1例、string signが2例、occlusionが2例であった(Table 2)。

Table 1 Summary of the clinical characteristics of the patients without hemorrhage

Case	Age/Sex	Initial symptom	Site of dissection	Infarction on MRI	Follow up symptom	Follow up period
1	50/M	Headache, hemiparesis	Rt VA	pons	No symptom	11Y 7Mo
2	45/F	Headache	Lt VA	No	No symptom	3Y 9Mo
3	59/M	Incidental	Rt VA	No	No symptom	3Y 2Mo
4	23/M	Wallenberg syndrome	Lt VA	No	Dizziness	2Y 11Mo
5	44/M	Headache	Lt VA	No	No symptom	2Y 10Mo
6	72/F	Incidental	Lt CA	No	Hemorrhage	2Y 4Mo
7	25/F	Headache, leg weakness	Lt ACA	frontal	No symptom	2Y 2Mo
8	63/M	Headache, dizziness	Rt VA	medulla	No symptom	2Y 2Mo
9	44/M	Headache, dysarthria	Lt VA	cerebellum	No symptom	1Y
10	73/M	Headache	Rt VA	No	No symptom	1Mo

Abbreviation: F; female, Lt; left, M; male, Mo; month, Rt; right, Y; year

初回検査より経時的に脳血管造影あるいはMRAにより検査したの9例で、観察期間は3週間から10年1カ月であった。画像上で変化したのは7例で、初回検査ではpearl & string signの3例、fusiform dilatationの1例、string signの2例とocclusionの1例であった。画像の変化は解離腔の拡大が2例、閉塞に至ったものが2例、狭窄の改善が2例、閉塞の再開通が1例であった。変化の時期は1月から2年4カ月に及んでいた。解離性動脈瘤の増大を確認したのは7カ月後と75カ月後で、この症例には血管内治療により動脈瘤親動脈閉塞術、あるいは親動脈閉塞術を施行した。

症 例 呈 示

〈症例1〉(閉塞例)

50歳男性で突然の頭痛、左片麻痺で来院した。右椎骨

動脈造影では椎骨動脈のpearl & string signと脳底動脈にintimal flapを認めた(Fig. 1A)。2週間後に施行したMRIでは脳底動脈まで壁内血腫が進展していた(Fig. 1D)。6カ月後の血管造影では右椎骨動脈は後下小脳動脈分岐後に閉塞、左椎骨動脈造影では脳底動脈が細く描出されていた(Fig. 1B, C)。MRIでは75カ月後にも血腫は部分的に残存し、1年10カ月後には血腫が消失していた(Fig. 1E, F)。11年7カ月经過し、神経症状はまったく認めず、血圧の管理を行っている。

〈症例3〉(増大例)

59歳男性で脳出血の精査時にMRAで右椎骨動脈にpearl & string signを示す動脈瘤が発見され、その拡張部は5mmであった(Fig. 2A)。降圧剤の投与が行われたが7カ月後のMRAでは拡張部は約7mmに増大していた(Fig. 2B)。椎骨動脈造影では右椎骨動脈に造影剤のpoolingを

Table 2 Serial imaging examined by cerebral angiography and/or MRA

Case No.	Initial findings	Follow up imaging (period from the initial onset)					
1	pearl & string sign of VA Angio	VA occlusion distal to PICA Angio (6Mo)	No change VA occlusion MRA (7.5Mo)	No change VA occlusion MRA (1Y 11Mo)	No change VA occlusion MRA (10Y 1Mo)		
2	pearl & string sign of VA Angio	enlargement of aneurysmal dilatation Angio (7.5Mo)	proximal occlusion of VA (Intervention)				
3	pearl & string sign of VA MRA	enlarged dilatation MRA (7Mo)	internal trapping of aneurysm (Intervention)				
4	VA occlusion proximal to PICA Angio	No change VA occlusion MRA (1Y 8Mo)	No change VA occlusion MRA (2Y 4Mo)				
5	fusiform dilatation of VA MRA	occlusion of VA Angio (10Mo)	partial recanalization of VA MRA (11Mo)	partial & irregular recanalization of VA proximal to PICA Angio (1Y)	No change of partial recanalization MRA (1Y 2Mo)	normal wall of recanalized VA Angio (2Y 4Mo)	No change of recanalized VA MRA (2Y 8Mo)
6	pearly dilatation of ICA Angio	No change of pearly dilatation MRA (2Y 4Mo)					
7	string sign of ACA Angio	improved string Angio (1Mo)					
8	VA occlusion distal to PICA MRA	No change of occlusion Angio (3W)	recanalized and string sign MRA (5Mo)	No change of string sign MRA (11Mo)	No change of string sign MRA (1Y 9Mo)		
9	string sign of VA Angio	normal wall Angio (1Mo 1W)					
10	pearl & string sign of VA Angio						

Abbreviations: ACA; anterior cerebral artery, Angio; cerebral angiography, ICA; internal carotid artery, Mo; month, MRA; magnetic resonance angiography, PICA; posterior inferior cerebellar artery, VA; vertebral artery, W; week, Y; year.

Fig. 1 **A:** Right vertebral angiogram at admission showing pearl and string sign and presence of intimal flap within basilar artery.
B: Right vertebral angiogram 6 months postonset. Right vertebral artery distal to right posterior inferior cerebellar artery was occluded.
C: Left vertebral angiogram 6 months postonset demonstrating narrowed basilar artery.
D: T1 weighted MR image 2 weeks postonset revealing intramural hematoma extending to basilar artery.
E: T1 weighted MR image 7.5 months postonset showing partially resolved intramural hematoma at basilar artery.
F: T1 weighted MR image 1 year 10 months postonset demonstrating complete disappearance of intramural hematoma.

A	B	C
D	E	F

Fig. 2 **A:** MR angiogram showing pearl and string sign at right vertebral artery.
B: MR angiogram at 7 months postonset demonstrating slight enlargement of aneurysmal dilatation.
C: Right vertebral angiogram showing pearl and string sign.
D: Left vertebral angiogram revealing retention of contrast media at dissected portion of right vertebral artery.
E: Right subclavian angiogram after treatment demonstrating occlusion of right vertebral artery.
F: Left vertebral angiogram after treatment revealing occlusion of right dissecting vertebral artery.

A	B
C	D
E	F

Fig. 3 **A:** MR angiogram showing dilatation of left vertebral artery.
B: Right vertebral angiogram 10 months postonset demonstrating normal wall of basilar artery.
C: Left vertebral angiogram 10 months postonset revealing occlusion of left vertebral artery.
D: Left vertebral angiogram 1 year postonset showing partial and irregular recanalization of vertebral artery. Vertebral artery distal to posterior inferior cerebellar artery (PICA) was occluded.
E: Left vertebral angiogram 2 years 4 months postonset demonstrating normal wall of left vertebral artery until PICA.
F - J: T1 weighted image (**F**) and T2 weighted image (**G**) showing thrombosed dissecting aneurysm 10 months postonset. T2 weighted image 1 year 2 months (**H**) postonset shows slightly enlarged dissection that compresses the medulla. T2 weighted images 1 year 5 months (**I**) and 2 years 2 months (**J**) postonset show thrombosed dissecting aneurysm gradually resolving.

A	B	C
D	E	
F	G	H
I	J	

伴う解離を認めたため治療を行うこととした (Fig. 2C, D). 離脱式コイルを用いて動脈瘤と椎骨動脈を閉塞した (Fig. 2E, F). 3年2カ月経過したが神経症状は認めず経過良好である.

〈症例5〉(閉塞後部分再開通例)

44歳男性で頭痛を生じ、MRAで拡張した左椎骨動脈を認めた (Fig. 3A). 10カ月後にめまいを生じ、椎骨動脈造影では右椎骨動脈には異常なく、左椎骨動脈は第4頸椎の高さで閉塞していた (Fig. 3B, C). MRIでは血栓化を示す動脈瘤を認めた (Fig. 3F, G). 初発頭痛から1年後(めまい

から2カ月後)の血管造影では左椎骨動脈は部分再開通し左後下小脳動脈までが造影されていたが、一部拡張像を示していた (Fig. 3D). 2年4カ月後の血管撮影では拡張部分は正常化していた (Fig. 3E). 経時的なMRIでは、初発頭痛から1年2カ月くらいまでは解離性動脈瘤部分は膨隆し延髄を圧迫していたが (Fig. 3H), 1年5カ月後より消退しはじめ約2年2カ月後にほぼ消失し (Fig. 3I, J), 神経学的異常を認めず経過良好である.

1. 発生頻度

解離性動脈瘤はまれな疾患と考えられていたが、画像診断の進歩により徐々に報告例が増加している¹⁾²⁾⁷⁾¹²⁾¹³⁾。その多くは出血発症例であり、山浦らによると解離性動脈瘤のうち出血発症は58%、脳虚血発症は33%である¹²⁾。非出血例の明らかな発生頻度は不明であるが、秋山らは椎骨動脈解離性動脈瘤7例のうち6例(85%)が非出血発症であったと報告している¹⁾。われわれも解離性動脈瘤20例のうち10例(50%)が非出血性だったことは、CTスキャンで出血がなくても解離性動脈瘤を疑い、血管造影やMRIを行えば非出血性解離性動脈瘤が発見される頻度は少ないと考えられる。非出血性解離性動脈瘤の発生部位について山浦らは椎骨動脈、脳底動脈、内頸動脈の順に多く、椎骨動脈の解離部位は非出血例では左側に有意に多いと報告している¹²⁾。われわれの症例でも同様に椎骨動脈が10例中8例(80%)と最も頻度が高かったが、明らかな左右差は認められなかった。

2. 発生のメカニズム

血管解離には種々の要因が加わり臨床症状を生じる。椎骨動脈系に最も解離が発生しやすい理由として機械的刺激があげられる¹¹⁾。椎骨動脈は頸椎横突起孔の中を走行するため頸椎の運動に伴い、動脈壁に捻れ、伸展、屈曲などの機械的刺激が加わる。また外膜下の解離はくも膜下出血を生じやすく、内膜下の解離が脳虚血発症に関与すると報告されている⁹⁾。

3. 臨床症状

解離性動脈瘤の発症様式は出血以外では脳虚血症状(33%)、頭痛(7%)、偶発的発見(2%)の順に多いとされている¹²⁾。虚血症状があれば、MRIあるいは脳血管造影が行われ、解離性動脈瘤が診断されるが、それ以外の場合には見逃されている可能性がある。われわれの経験した10例のうち7例が頭痛を伴っており、非出血例における頭痛は初発症状として重要であり、診断時に注意する必要がある⁸⁾。臨床経過は出血例に比べて比較的良好で、虚血の再発作は約4.2%である¹³⁾。しかし頭痛などの非出血症状で発見された1日から4日後にくも膜下出血をきたした報告もあり、急性期は慎重な臨床経過の観察を要する⁵⁾⁸⁾。

4. 画像の変化

1998年の全国調査では、非出血性解離性動脈瘤の血管造影上の所見ではnarrowingまたはocclusionが38%と最も多く、次にdilatationが35%で、典型的なpearl &

Fig. 4 Management of dissecting aneurysm.

string signは23%のみである¹²⁾。解離性動脈瘤は血管造影での所見が変化することが特徴とされている¹⁾²⁾⁴⁾。小野らは2週から3年の観察で67%が血管造影上正常化あるいは再開通したと報告している⁷⁾。画像上の変化の時期に関する報告は少なく、秋山らは椎骨動脈解離性動脈瘤6例での経時的血管造影で全例に変化を認め、発症3カ月以降には病変の新たな変化はなかったとしている¹⁾。反町らは虚血発症の後頭蓋窩解離性動脈瘤9例の血管造影では1カ月以降は改善に向かっていたとしている¹⁰⁾。Kitanakaらは非出血性解離性動脈瘤において52日から193日の間で血管造影上での変化を観察している⁴⁾。今回のわれわれの症例では9例において経時的な画像観察により、発症後1カ月から2年4カ月まで変化することが確認できた。2日以内の再出血が多い出血発症例と異なり、非出血例では変化する時期はやや遅いのではないかと推測される。初回の血管造影でpearl & string signを認めた2症例では約7カ月位まで増大しており、血圧管理を行っても慎重な観察が必要である。MRIによる壁内血腫も報告されている²⁾³⁾⁶⁾が、症例5では血管造影に比してMRIによる壁内血腫は非常にゆっくりと変化することを観察できた。血管造影だけでは血管の内腔のみの観察となり、解離性動脈瘤は解離に加えて壁内血腫の変化が重要であり、経時的な解離部位の変化や血腫の進行を観察するにはMRIのほうが有用である³⁾。

5. 治療方針

非出血発症の解離性動脈瘤に対する治療として外科的治療と内科的治療の報告があり、また抗血小板剤、抗凝固剤を用いるかどうかは現在のところcontroversialである。小野らは血圧の管理のみを勧めている⁷⁾。われわれも以前は抗凝固剤を投与してきた。しかし解離性動脈瘤に対して血圧管理を中心とした保存的治療でも、良好な経過が得られたことから、血圧管理が最も重要と考えられる。手術に

関しては手術した症例は転帰が良かったとしているがこれは動脈瘤増大などの限られた症例においてである⁷⁾。われわれは、解離腔が増大した症例に対して解離部位を血管内治療で閉塞し順調に経過したことから、解離腔の増大例では血管内治療による閉塞術が良好な予後を期待できると考える。以上のことから解離性動脈瘤に対する治療、加療方針としては、臨床症状などから解離性動脈瘤が疑われた場合にはMRI、MRAあるいは血管造影で診断する必要がある(Fig. 4)。発症後1から2カ月後は、くり返しMRIあるいは血管造影を行い解離腔の増大、進展の有無を観察し、6カ月を経過し解離腔の増大する症例は血管内治療を考慮すべきだと考える。また血管撮影上、解離腔は増大しなくても血栓化した動脈瘤はMRI上1年以上の経過で変化するため、1年から2年位までは注意深い観察が必要と考えられる。

ま と め

非出血性解離性動脈瘤の10例を経験し、臨床経過と画像所見の観察を行った。解離部位は椎骨動脈8例、内頸動脈1例、前大脳動脈1例であった。初発症状は頭痛が多く麻痺やめまいを伴っていた。解離性動脈瘤の血管造影あるいはMRA上の変化を7例で認め、その時期は1カ月から2年4カ月位まで及んでいた。保存的治療により臨床経過は比較的良好であるが、6カ月から7カ月位観察し解離腔が増大する場合は血管内治療を考慮する必要がある。非出血性解離性動脈瘤ではMRI、MRAまたは脳血管造影で1年から2年位までは注意深く観察することが重要である。

文 献

- 1) 秋山義典, 伊藤 毅, 熊井潤一郎, ほか: 非出血発症椎骨

- 動脈解離性動脈瘤の経時的血管撮影による検討. 脳外 24: 443-449, 1996
- 2) Hosoya T, Adachi M, Yamaguchi K, *et al*: Clinical and neuroradiological features of intracranial vertebrobasilar dissection. *Stroke* 30: 1083-1090, 1999
- 3) Jacobs A, Lanfermann H, Neveling M, *et al*: MRI- and MRA-guided therapy of carotid and vertebral artery dissections. *J Neurol Sci* 147: 27-34, 1997
- 4) Kitanaka C, Tanaka J, Kuwahara M, *et al*: Nonsurgical treatment of unruptured intracranial vertebral artery dissection with serial follow-up angiography. *J Neurosurg* 80: 667-674, 1994
- 5) Naito I, Iwai T, Sasaki T: Management of intracranial vertebral artery dissections initially presenting without subarachnoid hemorrhage. *Neurosurgery* 51: 930-938, 2002
- 6) Oelerich M, Stögbauer F, Kurlmann G, *et al*: Cranio-cervical artery dissection: MR imaging and MR angiographic findings. *Eur Radiol* 9: 1385-1391, 1999
- 7) 小野純一, 山浦 晶, 小林繁樹, ほか: 頭蓋内椎骨脳底動脈の解離性動脈瘤非出血例の治療方針—脳血管撮影所見の経時的変化および長期的転帰からの検討—. 脳卒中の外科 23: 167-172, 1995
- 8) 大城真也, 兵頭明夫, 福島武雄: 突発する後頭部痛4日後にくも膜下出血をきたした解離性椎骨動脈瘤の1例. 脳神経 55: 355-359, 2003
- 9) Sasaki O, Ogawa H, Koike T, *et al*: A clinicopathological study of dissecting aneurysms of the intracranial vertebral artery. *J Neurosurg* 75: 874-882, 1991
- 10) 反町隆俊, 伊藤 靖, 佐々木修, ほか: 後頭蓋窩解離性動脈瘤の治療方針. 脳卒中の外科 21: 385-390, 1993
- 11) 玉野吉範, 氏家 弘, 佐々木久里, ほか: 非外傷性頭蓋内内頸動脈解離性動脈瘤3症例の経験. 脳外 28: 53-59, 2000
- 12) 山浦 晶, 吉本高志, 橋本信夫, ほか: 非外傷性頭蓋内解離性動脈瘤の全国調査(第1報). 脳卒中の外科 26: 79-86, 1998
- 13) 山浦 晶, 吉本高志, 橋本信夫, ほか: 非外傷性頭蓋内解離性動脈瘤の全国調査(第2報). 脳卒中の外科 26: 87-95, 1998