症 例

くも膜下出血と小脳梗塞を同時に発症した 椎骨動脈-後下小脳動脈解離性動脈瘤の1例

鶴山 淳, 佐々木真人, 池田 充, 朝田 雅博

A Case of Dissecting Aneurysm of Vertebral Artery-Posterior Inferior Cerebellar Artery with Subarachnoid Hemorrhage and Cerebellar Infarction Coincidentally

Atsushi UYAMA, M.D., Masato SASAKI, M.D., Mitsuru IKEDA, M.D., and Masahiro ASADA, M.D.

Department of Neurosurgery, Yodogawa Christian Hospital, Osaka, Japan

Summary: We report a case of dissecting aneurysm of the vertebral artery (VA)-posterior inferior cerebellar artery (PICA) with subarachnoid hemorrhage (SAH) and cerebellar infarction coincidentally. A 40-year-old man presented with severe cervical pain with subsequent serious disturbance of consciousness. CT on admission showed SAH mainly in the posterior fossa, and magnetic resonance imaging (MRI) revealed acute infarction in the left cerebellar hemisphere. Angiography, 3D CT angiography and MRI showed no obvious bleeding source.

He underwent suboccipital external decompression due to progressive brain edema resulting from the cerebellar infarction. Three weeks later, follow-up angiography revealed a stenotic lesion at the left PICA. Proximal clipping of the left VA proximal to the left PICA was planned under the diagnosis of a dissecting aneurysm. Intraoperative findings revealed an aneurysm at the left VA proximal to the left PICA. The aneurysm dome had a surface dimple with circumferential hematoma, which seemed to be the bleeding source. Trapping of the aneurysm was performed. The patient was discharged with slight cerebellar ataxia.

We suggest that some dissecting vertebral aneurysms may induce subarachnoid hemorrhage and infarction coincidentally.

Key words:

- dissecting aneurysm
- vertebral artery
- posterior inferior cerebellar artery
- subarachnoid hemorrhage
- cerebellar infarction

Surg Cereb Stroke

(Jpn) 36: 311-315, 2008

はじめに

頭蓋内解離性動脈病変は比較的まれな疾患と考えられてきたが、近年報告例が増し病態が明らかになってきた。椎骨脳底動脈解離性動脈瘤のうち、出血および虚血の併発症例は報告例が少なく、その転帰は不良であることが多い²⁾

3) 8) 9) 12) 14) 16)。くも膜下出血および小脳梗塞を同時に発症した椎骨動脈-後下小脳動脈解離性動脈瘤の1例を経験したので報告する。

症 例

〈患者〉40歳、男性。

主訴：意識障害。

既往歴：高血圧。

現病歴：2005年10月中旬から後頭部痛が持続していた。10月下旬某日朝から激しい頸部痛を自覚した。1時間後意識障害をきたし、救急搬送された。搬送中、一時的に心肺停止となったが蘇生処置により心肺機能は回復した。

来院時所見：Glasgow coma scaleは14点で、両側外転神経麻痺を認めた。頭部CTで後頭蓋窩中心にくも膜下出血を認めた(Fig. 1)。血液検査では血液凝固系に異常所見は認めなかった。大量酸素投与にもかかわらず酸素化はきわめて不良で、胸部X線上神経原性肺水腫および誤嚥性肺炎の所見を認めた。

入院後経過：来院2時間後、脳血管造影を施行した。両側総頸動脈造影では明らかな動脈瘤・血管奇形などの所見は認めなかった。両側椎骨動脈造影はカテーテルの誘導に難渋した。併発した肺水腫により呼吸状態がきわめて不良で、長時間の検査続行は危険と判断し中止した。血管造影後の3D CT血管造影では、左椎骨動脈内腔の壁不整と狭小化を認めたが、明らかな出血源とは断定できなかった(Fig. 2)。さらに2時間後のMRIでは、拡散強調画像およびT2強調像で左小脳半球の急性期脳梗塞所見を認めた(Fig. 3)。梗塞による脳浮腫が進行したため、同日後頭下外減圧術を施行した。肺水腫に対しては人工呼吸器管理を行い、1週間後気管切開を施行した。3週間後の脳血管造影再検査では、左後下小脳動脈に狭窄および壁不整を認め(Fig. 4)、解離性動脈瘤と診断した。

手術：2回目の血管撮影から4日後、再出血予防目的で左後下小脳動脈の分岐部より近位部での左椎骨動脈 proximal clippingを計画した。体位は左上 park bench position

とし、前回の後頭下開頭の切開をさらに左方に延長した。梗塞を起こした左小脳半球を一部除去し左椎骨動脈に到達した。左後下小脳動脈分岐部より近位の左椎骨動脈に瘤状に拡大した動脈瘤を認めた(Fig. 5)。動脈瘤表面に陥凹を認め、周囲に暗赤色の血腫が付着しており、出血源となった破裂部位と考えられた。血管壁にはその他明らかな異常所見を認めなかった。動脈瘤の近位および遠位部椎骨動脈にclipをかけ動脈瘤のtrappingを行った。

術後経過：呼吸状態が安定し、人工呼吸器から離脱、気管切開も閉鎖した。軽度小脳失調が残存したが他に神経脱落症状なく、発症から4ヵ月後リハビリ目的で他院に転院となった。現在、杖を用いての自力歩行が可能となった。

考 察

山浦らの本邦での全国調査¹⁵⁾によると、解離性動脈瘤は出血が58%、脳虚血が33%、その他(頭痛・偶発的発見)が9%で発症していた。虚血発症例の3.4%が経過中くも膜下出血を併発していた。椎骨動脈解離性動脈瘤で出血および虚血を併発した症例報告は、渉猟した限り7報告8症例であった²⁾³⁾⁸⁾⁹⁾¹²⁾¹⁴⁾¹⁶⁾(Table 1)。発症年齢は13歳から75歳で、男性は5例で女性は3例であった。いずれも虚血で発症し12時間から1ヵ月後に出血を続発していたが、本症例のように同時に発症した報告はなかった。記載のあった6例の血管造影所見は、double lumenは2例、狭窄は2例、拡張は2例で特に共通した一定の所見は認めなかった。予後については総じて悪く生存例は2例のみであり、4例は出血発症後数日以内に死亡している。生存例2例はともに椎骨動脈の proximal clippingによる外科的治療が施行され、そのうち1例は後頭動脈-後下小脳動脈吻合術も

Fig. 1 CT scan on admission.
CT scan on admission reveals subarachnoid hemorrhage mainly in the posterior fossa.

Fig. 2 3D CT angiography 5 hours post onset.
3D CT angiography shows irregularity of the left VA wall (arrowheads).

Fig. 3 MRI 7 hours post onset.
MR T2-weighted image (A) and diffusion-weighted image (B) on admission reveal acute cerebral infarction in the left cerebellar hemisphere.

Fig. 4 Angiography 3 weeks post onset.
Left vertebral angiography 3 weeks post onset shows the stenotic lesion at the left PICA (arrows). (A: anteroposterior view, B: lateral view)

Fig. 5 Intraoperative photogram.
Intraoperative photogram shows aneurysmal dilatation at the left VA proximal to the left PICA. The aneurysm dome had a surface dimple with circumferential hematoma.

Table 1 Summary of reported cases and the present case

Case No.	Authors (year)	Age Sex	Angiographical findings	Clinical course	Operation	Outcome
1	Yokoyama <i>et al.</i> (1984)	31 female	double lumen	Brain stem infarction → ICH* after 9 days	none	dead
2	Takamatsu <i>et al.</i> (1989)	63 male	dilatation	Brain stem infarction → SAH after 7 days	none	dead
3	〃	57 female	none	Brain stem infarction → SAH after 2 days	none	dead
4	Okuchi <i>et al.</i> (1990)	13 male	dilatation	Cerebellar infarction → SAH after 2 days	Prox. clipping	MD
5	Onda <i>et al.</i> (1994)	54 female	not described	Infarction** → SAH after 1 month	none	dead
6	Kawada <i>et al.</i> (1994)	58 male	double lumen	Brain stem infarction → SAH after 4 days	none	dead
7	Inagaki <i>et al.</i> (2000)	75 male	stenosis	Cerebellar infarction → SAH after 14 days	Prox. clipping + OA-PICA	MD
8	Yamatani <i>et al.</i> (2004)	48 male	stenosis	Brain stem infarction → SAH after 12 hours	none	dead
9	Present case	40 male	stenosis	Cerebellar infarction & SAH coincidentally	Trapping	MD

SAH: subarachnoid hemorrhage, Prox.: proximal, MD: mild disability

OA-PICA: occipital artery posterior inferior cerebellar artery anastomosis

* intracerebral hemorrhage at brain stem with ventricular perforation, ** not described in detail

同時に行われていた。横山らの1例でのみ剖検所見が得られていた。形成時期の異なる血腫が内膜と外膜間に存在し、動脈壁全層に及ぶ変性疾患の存在が推測されていた¹⁶⁾。また、Mizutaniは虚血発症から2年後に出血にて再発した1例を報告している⁵⁾、虚血で発症し出血での再発例もあると考えられる。

本症例の発症日の経過をまとめると、後頭部痛後の意識障害で発症し当院に救急搬送された。来院時の頭部CTでも膜下出血を認めた。発症3時間後の脳血管造影では両側椎骨動脈造影は施行できず、さらに2時間後の3D CT血管造影では左椎骨動脈の壁不整所見を認めた。発症7時間後のMRI拡散強調画像で左小脳半球の急性期脳梗塞所見を認めた。すでにT2強調像でも高信号変化が出現しており、発症数時間後の脳梗塞所見と考えられた。このことから、出血とほぼ同時期に左小脳半球の虚血が始まっていたと推測された。

Mizutaniらは頭蓋内解離性動脈瘤8例9病変の病変部組織所見について報告している⁶⁾。全例で動脈壁の解離部位に血管壁の長軸方向に内弾性板の断裂を認め、解離性動脈瘤の原因と考察されていた。また解離腔が同一病変においても部位により、中膜を貫通し中膜の内外に位置していた。解離性動脈瘤は部位により、解離が内側あるいは外側へ向かうことも考えられる。Satoらは正常椎骨動脈の剖検所見を検討し、硬膜貫通部と後下小脳動脈分岐部間での内

膜・中膜・外膜の厚さの著明な変化を報告している¹¹⁾。この壁構造の変化が、血管壁内での解離腔の変位の一因とも考えられる。本症例では、後下小脳動脈より近位部の左椎骨動脈解離性動脈瘤が破裂しくも膜下出血が生じ、遠位の左後下小脳動脈近傍では内側に解離が向かい内腔を閉塞させた可能性も考えられる。

発症当日、左小脳半球の梗塞による脳浮腫が進行し、後頭蓋窩の減圧術が必要となった。併発した肺水腫による重篤な呼吸障害により、全身麻酔のリスクがきわめて高く可及的な手術時間の短縮が求められた。そのため迅速に後頭蓋窩の外減圧のみを行い、再度後日血管造影で出血源の精査を行う方針とした。3週間後の脳血管造影で左後下小脳動脈の狭窄所見より解離性動脈瘤と診断し、再出血予防の手術を行うこととした。

右椎骨動脈から脳底動脈への血流は良好であり、左後下小脳動脈の分岐部より近位部での左椎骨動脈 proximal clippingを計画した。左後下小脳動脈領域はすでに梗塞が生じており、後下小脳動脈への血行再建術は不要と判断した。近年、椎骨動脈解離性動脈瘤に対して、開頭術より低侵襲である血管内治療の適応が拡大している¹⁾⁴⁾¹⁰⁾¹³⁾。本症例では開頭術による直達手術を選択したことにより、直視下に出血原因と考えられた椎骨動脈瘤を確認できた。術前の脳血管造影で椎骨動脈の異常所見が描出されなかった原因として、外側に突出する動脈瘤を形成した解離腔内の

血栓化が考えられた。術前に血管造影による血管内腔のみならず、MRIなどでの血管壁の評価も必要であったと考えられる。Nagahataらが報告しているBasi-parallel Anatomic Scanning (BPAS)-MRIという撮像法⁷⁾は、椎骨脳底動脈の外観の描出に優れ術前評価に有用と考えられる。

解離性動脈瘤の出血発症例では、嚢状動脈瘤と比較し再破裂率が高く⁴⁾¹⁰⁾、早期治療が求められる。再出血を繰り返す例もあり、再出血後の生命予後はきわめて不良である⁴⁾。本症例でも重篤な肺水腫による全身麻酔の時間的制約がなければ、発症当日の減圧術の際同時に出血源の術中探索も必要であったと考えられる。一方虚血発症例は、山浦らの全国調査によると外科的治療群と保存的治療群との比較で、予後に有意差はないとされている¹⁵⁾。しかし、虚血発症でも出血が続発することがあり、その際の重篤な生命予後も念頭に置く必要がある。虚血発症後に出血が続発した報告例のうち生存した2例はともに手術加療がされており²⁾⁸⁾、虚血発症でも急性期の適切な外科的治療が必要な症例もあると考えられる。

結 語

くも膜下出血および小脳梗塞を併発した頭蓋内椎骨動脈解離性動脈瘤の1例を報告した。椎骨動脈解離性動脈瘤の診断や治療においては出血および虚血を併発することも念頭に置くことが肝要と考えられた。

文 献

- 1) Iihara K, Sakai N, Murao K, *et al*: Dissecting aneurysms of the vertebral artery: a management strategy. *J Neurosurg* 97: 259-267, 2002
- 2) 稲垣 徹, 斉藤孝次, 平野 亮, ほか: 虚血発症後14日目にくも膜下出血を来した椎骨動脈解離性病変の1例. *No Shinkei Geka* 28: 997-1002, 2000

- 3) 河田幸波, 目黒俊成, 萬代眞哉, ほか: 脳幹梗塞にて発症, クモ膜下出血をきたした椎骨脳底動脈解離性動脈瘤の1例. *脳卒中の外科* 22: 485-489, 1994
- 4) Kurata A, Ohmomo T, Miyasaka Y, *et al*: Coil embolization for the treatment of ruptured dissecting vertebral aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol* 22: 11-18, 2001
- 5) Mizutani T: A fatal, chronically growing basilar artery: a new type of dissecting aneurysm. *J Neurosurg* 84: 962-971, 1996
- 6) Mizutani T, Kojima H, Asamoto S, *et al*: Pathological mechanism and three-dimensional structure of cerebral dissecting aneurysms. *J Neurosurg* 94: 712-717, 2001
- 7) Nagahata M, Abe Y, Ono S, *et al*: Surface appearance of the vertebrobasilar artery revealed on basiparallel anatomic scanning (BPAS)-MR imaging: Its role for brain MR examination. *AJNR Am J Neuroradiol* 26: 2508-2513, 2005
- 8) 奥地一夫, 渡部安晴, 平松謙一郎, ほか: Wallenberg症候群の原因としての椎骨動脈解離性動脈瘤. *No Shinkei Geka* 18: 721-727, 1990
- 9) 恩田英明, 谷川達也, 竹下幹彦, ほか: 椎骨動脈解離性動脈瘤の治療. *脳卒中の外科* 22: 293-299, 1994
- 10) Rabinov JD, Hellinger FR, Morris PP, *et al*: Endovascular management of vertebrobasilar dissecting aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol* 24: 1421-1428, 2003
- 11) Sato T, Sasaki T, Suzuki K, *et al*: Histological study of the normal vertebral artery—etiology of dissecting aneurysms—. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 44: 629-636, 2004
- 12) 高松和広, 太田祥子, 滝沢貴昭, ほか: 脳幹梗塞で発症しクモ膜下出血で死亡した椎骨脳底動脈解離性動脈瘤の2例. *広島医学* 42: 692-696, 1989
- 13) 宇田武弘, 村田敬二, 一ノ瀬努, ほか: 破裂椎骨動脈解離性動脈瘤に対する血管内治療—proximal flow arrestを用いた internal trappingの有用性—. *No Shinkei Geka* 34: 1009-1015, 2006
- 14) 山滝 昭, 倉島志八, 上田慎介: 虚血発症後, 同日内にくも膜下出血を発症した椎骨動脈解離性動脈瘤の1例. *No Shinkei Geka* 32: 723-728, 2004
- 15) 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病変の全国調査(第1報, 第2報). *脳卒中の外科* 26: 79-95, 1998
- 16) 横山元晴, 栗田 勇, 山下三成, ほか: 椎骨脳底動脈解離性動脈瘤の1剖検例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 24: 343-348, 1984