症 例

くも膜下出血をきたした carotid rete mirabile に合併した後交通動脈動脈瘤の 1 例

佐藤 裕之, 小泉 孝幸, 塚本 佳広
遠藤 深, 小林 勉

Posterior Communicating Artery Aneurysm Associated with Carotid Rete Mirabile Presenting as Subarachnoid Hemorrhage: A Case Report

Hiroyuki SATO, M.D., Takayuki KOIZUMI, M.D., Yoshihiro TSUKAMOTO, M.D., Shin ENDO, M.D., and Tsutomu KOBAYASHI, M.D.

Department of Neurosurgery, Takeda General Hospital, Aizuwakamatsu, Fukushima, Japan

Summary: We report a case of true posterior communicating artery (Pcom) aneurysm associated with carotid rete mirabile presenting subarachnoid hemorrhage.

A 77-year-old woman was admitted to our hospital because of disturbance of consciousness. Computed tomography showed subarachnoid hemorrhage. Cerebral angiography demonstrated 2 aneurysms arising from the left Pcom and left posterior cerebral artery (P1-P2 junction). The right carotid angiography demonstrated an abnormal vascular network around the cavernous portion of internal carotid artery (ICA), so-called “carotid rete mirabile.” The right ICA was aplastic and the left ICA was hypoplastic. Two days after onset, coil embolization was performed. As a result, the left P1-P2 junctional aneurysm was almost completely occluded, but it was impossible to occlude the left Pcom aneurysm.

Twenty-four days after onset, neck clipping of the responsible left Pcom aneurysm was carried out through the left subtemporal approach. Postoperatively, the patient experienced temporary left oculomotor nerve palsy but improved. Follow-up angiography revealed disappearance of the left Pcom aneurysm and almost complete obliteration of the left P1-P2 junction aneurysm.

Key words:

- subarachnoid hemorrhage
- posterior communicating artery
- cerebral aneurysm
- rete mirabile
- clipping

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 39: 437-441, 2011

はじめに

carotid rete mirabile (CRM)は海綿静脈洞付近に位置する内頸動脈と外頸動脈の間に存在する血管網であり, lower mammals (ヒツジ, ブタなど)には通常存在する¹⁾.

今まで文献上渉猟しえた範囲では 37 例の報告がされているのみでありきわめてまれである. 今回, われわれはくも膜下出血で発症した CRM に合併した破裂脳動脈瘤の 1 例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する.

Fig. 1 CT scans (A, B) performed on admission revealed subarachnoid hemorrhage mainly in the left sylvian fissure and basal cistern. The skull base bone target CT scan image (C) showed hypoplastic of the right carotid canal.

A | B | C

Fig. 2 Lateral views (A, B) and anteroposterior view (C) of right common angiography, demonstrating the carotid rete mirabile (arrowhead) fed by the internal maxillary artery (arrow) and the right internal carotid artery aplasia.

A | B
C

症 例

患者：77歳，女性。

既往歴：高血圧・慢性腎不全にて近医投薬加療中。

家族歴：くも膜下出血含めて特記すべきことなし。

現病歴：2009年11月3日午前4時すぎ，突然の嘔気を訴え，その後意識障害を呈したため当院へ救急搬送となった。

入院時神経学的所見：JCS (Japan Coma Scale)-20,

GCS (Glasgow Coma Scale) 9点(E3, V1, M5)，左共同偏視し発語はなく高度右片麻痺を認めた。

入院時検査所見：BUN 22.9 mg/dl，クレアチニン 1.19 mg/dl。

入院時頭部CT：脳底槽から左シルビウス裂に比較的厚いくも膜下出血を認めた(Fig. 1A, B)。骨条件では，左頸動脈管は正常だが右頸動脈管の狭小化を認めた(Fig. 1C)。

以上よりWFNS grade 4, Fisher's group 3のくも膜下出血の診断で入院となった。

Fig. 3 Lateral views of the left carotid angiography, demonstrating the left internal carotid artery hypoplasia (A) and supraclinoid portion of ICA, fed by the external carotid artery (ECA). The left anterior cerebral artery and middle cerebral artery was fed by the middle meningeal artery and the occipital artery (B).

A|B

Fig. 4 The right vertebral angiogram demonstrating posterior cerebral artery (P1-2 junction) aneurysm (arrowhead) on Caldwell view (A) and the Pcom aneurysm (arrow) on lateral view (B).

A|B

脳血管撮影：右総頸動脈撮影(**Fig. 2**)では右 internal carotid artery (ICA) が起始部より造影されず、主に右 internal maxillary artery の分枝から(はっきりとはしないが foramen rotundum か superior orbital fissure を通って)海綿静脈洞部で網状の血管を介して右 ICA の supraclinoid portion が示現され、右中大脳動脈が造影された。右前大脳動脈 A1 portion は造影されなかった。左総頸動脈撮影(**Fig. 3**)では左 ICA は非常に細くなって slow circulation にて示現されたが、主に左外頸動脈の分枝から前篩骨動脈・眼動脈を介して左 ICA の supraclinoid portion が造影された。また左前大脳動脈・中大脳動脈は順行性に造影されず、左 middle meningeal artery から anterior falx artery を介して前大脳動脈の一部が、左 occipital artery

から頭蓋骨を経由する形で左頭頂葉の一部皮質枝が描出された。右椎骨動脈撮影(**Fig. 4**)では左後交通動脈を介して、左内頸動脈・左中大脳動脈および両側前大脳動脈が造影され、左後大脳動脈 P1-P2 分岐部と左後交通動脈に脳動脈瘤を認めた。

これらの所見より、先天性右 ICA 欠損、左 ICA 低形成が存在し、右外頸動脈から rete mirabile を介して頭蓋内右 ICA が造影され、hemodynamic stress にて左後大脳動脈と左後交通動脈に脳動脈瘤が発生したと考えられた。年齢や上記所見を考慮して脳動脈瘤への治療としてはコイル塞栓術を選択した。

入院後経過：発症 2 日後に全身麻酔下でコイル塞栓術を行った。右椎骨動脈に guiding catheter を留置し、まず

Fig. 5 The postoperative right vertebral angiogram showed almost obliteration of the left P1-2 junctional aneurysm by coil embolization (A) and disappearance of the left Pcom aneurysm by neck clipping (B).

A | B

は左後大脳動脈 P1-P2 分岐部動脈瘤を塞栓した。ついで左後交通動脈瘤に catheterization を試みたが microcatheter を進めると slip out してしまい、結局後交通動脈瘤に関しては塞栓術を断念した。残る動脈瘤に関しては、術後腎機能の悪化も認めたため状態の改善を待って、clipping を行う方針とした。

術後意識障害は改善し、失語・右片麻痺が残存するも改善傾向を認めた。しかし、発症 9 日目より失語・右片麻痺の増悪を認め、脳血管攣縮によると思われる脳梗塞巣を両側前大脳動脈と左中大脳動脈領域に認めた。その後腎機能障害を含めて全身状態の回復安定を確認し、発症 24 日目に破裂脳動脈瘤と考えていた左後交通脳動脈瘤に対する開頭クリッピングを左 subtemporal approach で行った。

手術：まず頭蓋固定の際には、側副血行の 1 つである左 occipital artery の損傷に留意した。開頭では必要に応じて直接血行再建術も行えるように浅側頭動脈を温存し、コイル塞栓を行った動脈瘤の影響でやや前方からの視野確保必要の可能性も考慮して、zygomatic arch を一部除去し左側頭下開頭を行った。左 P1-P2 分岐部の動脈瘤にはコイルが透見され、内部は血栓化していると思われた。左 P1 から後交通動脈に分岐する部位は全体的な膨らみを認め、その奥に脳動脈瘤を認めた。左後交通動脈周囲には陳旧性の凝血塊が充満しており、動脈瘤頸部が菲薄化していないことを確認して左後交通動脈瘤に対してクリッピングを行った。

術後経過：術後左動眼神経麻痺を認めたが他症状の悪化は認めず、CT でも新たな異常は認めなかった。

術後血管撮影ではクリッピングを行った動脈瘤の消失を認め、コイル塞栓術を施行した動脈瘤もわずかに neck remnant はあるが、再開通は認めなかった (Fig. 5)。

その後徐々に右麻痺失語の改善を認め経口摂食確立し会話による意思の疎通が可能となったが、軽度右麻痺・失語残存し介護施設へ退院した。

考 察

carotid rete mirabile は ICA の海綿静脈洞近傍に位置し、外頸動脈系から血液が供給され ICA へ流出する血管網である。その発生についてはもし ICA が始めから形成されないのであれば、embryonic vessel が側副血行としてそのまま遺残するはずであり、もし ICA が一度形成された後退縮していくなら embryonic vessel は退化して側副血行としてほとんど遺残されないはずである。また、CRM は人の発生過程では存在せず、lower mammals (ヒツジ、ブタ、ウシなど) には通常存在するとされている¹⁾。これらのことより CRM は ICA が一度形成されたあとの退縮に伴い embryonic vessel の遺残ではなく development shift としての原始的垂系の表出との報告がある⁵⁾。

CRM は放射線学的に 6 つ血管撮影上の特徴があり、①近位 ICA は無形成か低形成である、②rete は ICA 海綿静脈洞部と頸動脈の間に存在する、③ICA の supraclinoid portion は正常であり、血流は rete と眼動脈から供給される、④眼動脈は拡張している、⑤両側性(少数ではあるが片側性の報告もある)、⑥硬膜内にもやや血管のような異常血管を認めない、などである¹⁾。本例の右 ICA はまさに CRM としての所見を満たしていると考えられる。ところが、左 ICA は眼動脈を介する外頸動脈や硬膜動脈および骨を貫通しての頭皮動脈からの側副血行や遠位 ICA が十分に造影されないとの所見も認め、このような所見からは年齢を考慮しても後天的な動脈硬化性の閉塞性変化としても矛盾しないように考えられた。しかし、近位 ICA が

Table 1 Summary of reported cases of cerebral aneurysm associated with carotid rete mirabile

Author & year	Age	Sex	Clinical findings	Location of aneurysms	Treatment
Hawkins & Scott (1968)	37	M	SAH	basilar tip	
Tanaka <i>et al.</i> (1996)	49	M	SAH	Acom	clipping
Herwadkar <i>et al.</i> (2006)	52	F	SAH	basilar tip	coil
Isaka <i>et al.</i> (2007)	74	F	SAH	carotid rete mirabile	aneurysmectomy
Ichihashi (2009)	54	F	incidental	basilar tip	observation
present case	77	F	SAH	Pcom, P1-P2	clipping, coil

SAH: subarachnoid hemorrhage, Acom: anterior communicating artery, Pcom: posterior communicating artery.

ほぼ一様の血管径を保ち海綿静脈洞部まで造影されていることや頸動脈から血流を受けた眼動脈が拡張していることなどの所見も認めるなどより、本例の左 ICA も先天的に低形成の可能性がある、そこに後天的要因により側副血行が発達したと考えられた。

CRM は脳虚血、くも膜下出血、脳出血後の精査で発見されることが多い。その中でもくも膜下出血発症の原因としては動脈瘤破裂によるもの²⁾⁷⁾、あるいは rete を構成する吻合血管の波状による出血が報告されている⁶⁾。吻合血管の波状による出血とは、通常硬膜外に存在することが大部分の rete から遠位 ICA への吻合血管が硬膜内・くも膜内で hemodynamic stress により波状をきたす出血、のことであるが、他にも少数例だが硬膜内に存在する rete を構成する血管からの出血あるいは血管撮影で指摘できない吻合血管や rete 上のきわめて小さな脳動脈瘤からの出血の可能性もある。現在まで報告されている CRM 36 例のうちくも膜下出血発症は 14 例であるが、そのうち hemodynamic stress により発生したと考えられる脳動脈瘤の破裂によるものは 5 例 (5/14) であり²⁾⁷⁾、吻合血管の波状による出血 (9/14) と比べると少ない。脳動脈瘤の発生部位としては報告の 5 例中 4 例が posterior circulation に発生しており、本例も同様である (Table 1)。また、rete を構成する vascular network 上に発生した pseudoaneurysm の破裂の報告もあり⁴⁾、このような動脈瘤の場合には trapping や aneurysmectomy を含めた通常の動脈瘤とは異なる治療が必要である。このように、CRM 合併脳動脈瘤の治療においては rete を構成する vascular network 上の動脈瘤か否かを念頭におき、治療戦略を検討しておく必要があると思われる。

CRM 含めて ICA 閉塞に伴った動脈瘤については直達手術による術後症状の悪化が多く治療困難であるという報告もあり、可能なら瘤内塞栓術が望ましいとする報告も散見される。CRM に合併した脳動脈瘤 5 例のうち本例の後大脳動脈瘤と他例脳底動脈先端部動脈瘤の合計 2 例には瘤内

塞栓術が行われている²⁾。瘤内塞栓術が本例の後交通動脈瘤のように不能と終わった場合には直達手術を選択することとなるが、その手術アプローチについては rete の存在などの特有の考慮すべき問題もあると思われる。後交通動脈瘤については transsylvian アプローチが比較的接近しやすいという報告が多いが、CRM の rete は carotid-oculomotor space および optico-carotid space に異常血管が多数認めるという報告があるように⁴⁾、transsylvian アプローチ以外の選択が適していると考えられる。さらに後交通動脈の後半部に存在する動脈瘤については subtemporal アプローチの方が適しているとの報告もある⁵⁾。本例では CRM 合併および後交通動脈後半部に存在する動脈瘤であることを考慮し、subtemporal アプローチを選択したことも、良好な回復を得た一因と考えている。

文 献

- 1) 荒木有三, 今井 秀, 斉藤 晃, ほか: 弾力繊維性仮性黄色腫を合併した carotid rete mirabile の 1 例. 脳神経 38: 495-500, 1986
- 2) Herwadkar A: A case of carotid rete mirabile associated with basilar tip aneurysm. *Interv Neuroradiol* 12 (2): 161-164, 2006
- 3) 市橋鋭一: Bilateral carotid retia with a basilar tip aneurysm: case report: 第 3 回 NICHE NEURO-ANGIOLOGY CONFERENCE Program: 2009
- 4) 井坂文章, 橋本憲司, 岡本新一郎, ほか: Case of so-called carotid rete mirabile associated with subarachnoid hemorrhage—operative findings and its implication—: 第 1 回 NICHE NEURO-ANGIOLOGY CONFERENCE Program: 2007
- 5) Kim MS, Lee SJ, Lee CH, *et al*: Bilateral segmental absence of the internal carotid artery with rete compensation associated with absence of basilar artery: case report. *Surg Neurol* 65: 615-620, 2006
- 6) Mikami T, Takahashi A, Houkin K: Carotid rete mirabile associated with subarachnoid hemorrhage. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 45: 201-204, 2005
- 7) 田中裕一, 増沢紀男, 北野郁夫, ほか: 前交通動脈瘤, 内頸動脈間吻合, rete carotidis を伴った内頸動脈形成不全症. 脳神経 48 (2): 170-174, 1996