症 例

血栓内出血により急性閉塞をきたした dolichoectatic aneurysm の1例

中野 弘康¹, 原科 純一¹, 木村 仁¹, 齋藤 紀彦¹
平田 容子¹, 伊豆蔵英明¹, 伊藤 圭介¹, 櫻井 貴敏¹
青木 和哉¹, 原岡 囊², 岩渕 聡¹

A Case of a Dolichoectatic Aneurysm Presenting with Acute Total Basilar Artery Occlusion Following Hemorrhage in Thrombus

Hiroyasu NAKANO, M.D.,¹ Junichi HARASHINA, M.D.,¹ Hitoshi KIMURA, M.D.,¹
Norihiko SAITO, M.D.,¹ Yoko HIRATA, M.D.,¹ Hideaki IZUKURA, M.D.,¹
Keisuke ITO, M.D.,¹ Takatoshi SAKURAI, M.D.,¹ Kazuya AOKI, M.D.,¹ Jyo HARAOKA, M.D.,²
and Satoshi IWABUCHI, M.D.¹

¹Department of Neurosurgery, Toho University Ohashi Medical Center, and ²Department of Neurosurgery, Tokyo Medical University, Tokyo, Japan

Summary: A dolichoectatic aneurysm is a giant fusiform aneurysm characterized by elongation, tortuosity, and ectasia. It represents 0.1% to 0.7% of cerebral aneurysms, and usually presents with compression of the brain stem or occlusion of penetrating branches; however, there are no reports of acute total occlusion of the basilar artery in a patient with the dolichoectatic aneurysm and no prodromal symptoms. Here, we report a case of a 60-year-old man presenting to our emergency department with acute vertigo and disturbance of consciousness. He had a medical history of hypertension that was being treated with antihypertensives, and had visited another center three years previously for evaluation of vertigo, and was diagnosed as dolichoectatic aneurysm of the basilar artery. As he had no symptoms other than vertigo, antihypertensives were prescribed for blood pressure control. A cranial CT scan revealed a mass lesion adjacent to the right pons. Digital subtraction angiography (DSA) showed accumulation of contrast material in the peripheral segment of the left vertebral artery, indicating total occlusion of the basilar artery. Endovascular treatment was performed, with intra-arterial urokinase injection and mechanical fragmentation of the thrombosis in the occluded segment of the main trunk of the basilar artery. However, it was not possible to reopen the basilar artery and the patient developed cerebellar infarction. We performed immediate surgical decompression and ventricular drainage; however, he died on day 9 after admission.

To our knowledge, this is the first report of acute total basilar artery occlusion in a patient with dolichoectatic aneurysms.

Key words:

- dolichoectatic aneurysm
- basilar artery occlusion
- natural history
- endovascular therapy
- brain stem infarction

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 40: 362-366, 2012

¹ 東邦大学医療センター大橋病院 脳神経外科, ² 東京医科大学病院 脳神経外科 (受稿日 2011. 11. 30) (脱稿日 2012. 7. 2) [連絡先: 〒153-8515 東京都目黒区大橋 2-17-6 東邦大学医療センター大橋病院 脳神経外科 中野弘康] [Address correspondence: Hiroyasu NAKANO, M.D., Department of Neurosurgery, Toho University Ohashi Medical Center, 2-17-6 Ohashi, Meguro-ku, Tokyo 153-8515, Japan]

はじめに

dolichoectatic aneurysm は伸展、曲折し、拡張した動脈に生じた巨大紡錘状動脈瘤と定義される²⁾。一般に、dolichoectatic aneurysm の発生頻度は全脳動脈瘤の0.1-0.7% を占め、しばしば脳幹圧迫症状や穿通枝梗塞などを発症するが³⁾⁵⁾、前駆症状がなく突然母動脈ごと完全閉塞して来院した報告例はない。今回われわれは、脳底動脈に生じた dolichoectatic aneurysm が血栓内出血にて完全閉塞した症例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：60 歳、男性。

主訴：めまい、嘔吐、構音障害。

既往歴：高血圧、脊椎側彎症(15 歳時に手術)。

現病歴：2007 年春頃より眩暈を自覚した。同年 9 月より右方視の際に複視を自覚したため、他院を受診した。頭部 MRI にて脳底動脈瘤を指摘され、造影 CT では曲折、伸展、拡張した紡錘状動脈瘤であり、dolichoectatic aneurysm と診断された。この時点で明らかな血栓は認められなかった(**Fig. 1**)。以後血圧の厳重な管理がなされ、日常生活は通常に行われていた。2010 年 8 月、突然の嘔吐を

伴う回転性めまいと構音障害が出現したために救急隊を要請した。救急隊到着時、意識レベル JCS I-1 で軽度の構音障害を認めたのみで明らかな麻痺は認められなかったが、搬送中の車内で意識レベルが急速に低下した。

来院時現症：意識は JCS で III-200, GCS で E1V1M2。円背を認める以外、一般身体所見に明らかな異常は認められなかった。神経学的所見として、右眼球は外転位を呈しており、瞳孔は左右同大(径 3 mm)で、対光反射は緩慢であった。四肢の明らかな麻痺は認められなかった。

入院時検査所見：一般末梢血、生化学、凝固検査に異常はなかった。胸部レントゲン：脊椎側彎症を認めたが、肺野に異常はなく、心拡大も認めなかった。心電図：正常洞調律で明らかな不整脈は認めなかった。頭部 CT にて動脈瘤内に高吸収域の mass lesion を認め、造影 CT、3D-CTA では、中枢側の左椎骨動脈の描出は認められたが、その末梢側および、右椎骨動脈、脳底動脈も造影されなかった。また両側とも後交通動脈は描出されなかった(**Fig. 2**)。

臨床経過：神経所見から脳底動脈の血流障害が示唆され、頭部 CT から脳底動脈の血栓化動脈瘤と血栓内出血が疑われ、引き続き脳血管撮影を施行した。左椎骨動脈撮影では、左椎骨動脈の末梢側で造影剤が停滞し、脳底動脈は全く描出されなかった。右椎骨動脈も描出不良であり、脳

Fig. 1 Cranial MRI scan and CT angiogram obtained at a previous hospital in September 2007, when the patient presented with vertigo and double vision. There is a large dolichoectatic aneurysm in the prepontine cistern. (**A-C**: cranial MRI)-(A) T1-weighted image, (B) T2-weighted image, (C) source image of MRA, **D-F**: serial coronal images of CTangiography)

A	B	C
D	E	F

Fig. 2 A cranial computed tomogram obtained in August 2010 at our hospital shows a mass lesion with a high density area in the prepontine cistern (**A**). A contrast enhanced computed tomogram shows the patent left vertebral artery as a high density area. Blood flow was not seen in the mass lesion (aneurysm). The right vertebral artery, basilar artery, and bilateral posterior communicating artery were not visualized in the CT angiogram (**C**).

Fig. 3 Digital subtraction angiography (DSA) was performed immediately after admission and revealed an occlusion at the distal left vertebral artery (arrowhead) (an A-P view (**A**) and a lateral view (**B**) of the left vertebral angiogram). The basilar and right vertebral arteries were not visible.

A | B

底動脈の完全閉塞が示唆された(**Fig. 3**)。引き続き、透視下に左椎骨動脈まで microcatheter を誘導し、urokinase 30 万単位の動注および血栓の mechanical な破碎を施行した結果、右の椎骨動脈と脳底動脈のわずかな描出は得られたものの、脳底動脈の再開通は得られなかった(**Fig. 4**)。術後、瞳孔の左右差が認められ、頭部 CT にて両側の小脳半球に広範な梗塞と腫脹が確認されたため、後頭下外減圧術並びに脳室ドレナージ術を施行したが、意識レベルの改善はなく脳ヘルニアのため第 9 病日に永眠された。病理解

剖の承諾は得られなかった。

考 察

動脈瘤は形態的な特徴により、明確な neck を有し主に動脈の分岐部に発生する saccular aneurysm と、明確な neck を持たずに血管全体または一部が拡張し、動脈非分岐部に生じる fusiform aneurysm に分類される⁹⁾¹⁰⁾。

dolichoectasia は、拡張し曲がりくねった状態の血管を意味し、椎骨脳底動脈系によくみられる病態である。doli-

Fig. 4 Endovascular treatment was performed, with intra-arterial urokinase injection and mechanical fragmentation of the thrombus in the occluded segment of the basilar artery aneurysm. Injection from the microcatheter in the left vertebral artery (VA) revealed the occlusion of the distal port (arrowhead) of the VA (**A**: AP view, **B**: lateral view). Partial recanalization of the occluded thrombosed aneurysms was seen after endovascular treatment (an AP view (**C**) and a lateral view (**D**) of the left VA angiogram).

A	B
C	D

choectasia に巨大紡錘状動脈瘤が加わったものが dolichoectatic aneurysm と定義される²⁾。脳底動脈壁の解離または動脈硬化に発生原因があると考えられ、血栓化動脈瘤の様相を呈したり、成長、巨大化する例もみられるが、その病態についてはいまだ不明な点も多い。

dolichoectatic aneurysm の自然歴、本邦における治療法や治療成績を検証するために、2004 年、氏家らは全国の日本脳神経外科学会認定施設を対象としてアンケート調査を行い、60 症例の結果を本誌にて報告している¹¹⁾。60 症例のうち 52 症例が dolichoectatic aneurysm で主な初発症状は mass effect (48%)、脳虚血 (19%)、脳出血 (17%) であった。初発後保存的加療されていた 30 例では、主に高血圧の治療に加え、抗血小板療法が行われていたが、平均観察期間 3.6 年以内に 75% が死亡していた。根治的外科治療が行われたのは 52 例中 22 例で、初発急性期に外科的治療を受けたのは 22 例中 2 例であった。その他の 20 例は初発後 mass effect の進行による進行性の神経症状などのために、平均して 1.4 年の経過観察後に外科的治療が選択された。治療には全例で親動脈の閉塞が施行されており、これに伴って生じる脳虚血予防に 20 例中 16 例では radial artery を用いた high flow bypass が行われていた。ほと

んどの症例が dolichoectatic aneurysm の進行性増大に伴う脳幹圧迫や穿通枝閉塞による脳虚血で症状が徐々に増悪したため、最終的に手術加療がなされたという結果であった。

dolichoectatic aneurysm の発症機序に関しては、いわゆる動脈硬化を基盤として発症した theory⁷⁾と解離性動脈瘤の増大成長 theory が提唱されている⁶⁾。本症例の発症機序については、剖検が得られていないので推測の域を超えないが、今回の発症に至る 3 年の間に動脈壁の解離を発端とした壁内血栓が徐々に生じ、血栓化した動脈瘤内への新生血管や、sinusoid 様の血管網の発達が生じ、最終的に器質化した血栓内での急性出血により、突然の脳底動脈の完全閉塞をもたらしたと考えられた⁴⁾⁶⁾⁷⁾¹¹⁾。

一方、mass effect や穿通枝梗塞で発症した dolichoectatic aneurysm が経過中に増大し、脳底動脈の閉塞をきたした例はこれまでに数例報告されている¹⁾⁸⁾。しかし、本症例は、一過性めまいの精査で dolichoectatic aneurysm が発見され、その後通常の日常生活を送っていたが、3 年後に突然、脳底動脈の完全閉塞をきたしたという経過である。少なくとも発症 3 年前の CT では、動脈瘤内に血栓は認められておらず、この 3 年の間に徐々に血栓化が進

行したと推察されるが、その間まったく穿通枝障害などの神経症状を呈することなく、完全閉塞に至った点は興味深い。

部分血栓化動脈瘤内の器質化血栓内の急性出血により、脳底動脈が閉塞した例に対して、局所血栓溶解療法を施行した報告は、文献を渉猟しえた限りでは認められず、その妥当性については議論のあるところと思われる。しかし、本例においては、来院時急速に意識状態が悪化し、血管撮影で脳底動脈がまったく描出されなかったため、このままでは脳幹死は免れないと判断し、少しでも脳底動脈の再開通を得ることにより脳幹虚血を最小限に止める可能性を期待して、家族の承諾を得たうえで、少量のウロキナーゼの選択投与を施行した。その結果、血管撮影上、脳底動脈の遠位部の開通は得られなかったものの、両側の椎骨動脈、脳底動脈の近位部は描出されるようになった。本例では臨床的には広範な脳幹梗塞を回避することはできなかったが、もし脳底動脈遠位まで再開通できていれば、どのような経過であっただろう。今後の症例の集積が望まれる。

文 献

- 1) Anson JA, Lawton MT, Spetzler RF: Characteristics and surgical treatment of dolichoectatic and fusiform aneurysms. *J Neurosurg* 84: 185-193, 1996
- 2) Chen JW, Zabramski JM: Giant fusiform and serpentine aneurysms, in Awad IA, Barrow DL (eds): *Giant Intracranial Aneurysms*. Park Ridge III American, 1995, pp233-252
- 3) Drake CG, Peerless SJ: Giant fusiform intracranial aneurysms: review of 120 patients treated surgically from 1965 to 1998. *J Neurosurg* 87: 141-162, 1997
- 4) Koyama S, Kotani A, Sasaki J: Giant basilar artery aneurysm with intramural hemorrhage and then disastrous hemorrhage: case report. *Neurosurgery* 39: 174-178, 1996
- 5) Locksley HB: Report on the Cooperative Study of Intracranial Aneurysms and Subarachnoid Hemorrhages. Section V, part II. Natural history of subarachnoid hemorrhage, intracranial aneurysms and arteriovenous malformations. Based on 6368 cases in cooperative study. *J Neurosurg* 25: 321-368, 1966
- 6) 水谷 徹, 小島英明: 部分血栓化した巨大本幹脳動脈瘤の臨床経過と病理所見—慢性解離性脳動脈瘤の概念—. 脳卒中の外科 32: 331-337, 2004
- 7) Nakatomi H, Segawa H, Kurata A, et al: Clinical study of intracranial fusiform and dolichoectatic aneurysms. Insight on the mechanism of growth. *Stroke* 31: 896-900, 2000
- 8) 雄山博文, 服部健一, 鬼頭 晃, ほか: 脳底動脈の dolichoectasia が巨大血栓化脳動脈瘤に移行した一例. 脳卒中の外科 39: 133-137, 2011
- 9) Stehbens WE: Pathology of cerebral blood vessels. St Louis, CV Mosby Co, 1972, pp353-414
- 10) Stehbens WE: Aneurysms and anatomical variation of cerebral arteries. *Arch Pathol* 75: 45-64, 1963
- 11) 氏家 弘, 比嘉 隆, 堀 智勝: Dolichoectatic basilar aneurysm の自然予後および現在の治療状況—アンケート調査の分析—. 脳卒中の外科 32: 338-345, 2004