症 例

脳梁周囲槽に血腫を伴い半球離断症状を呈したくも膜下出血の1例

森本 堯之¹, 永田 清¹, 二階堂雄次¹, 徳永 英守¹
出口 潤¹, 小谷有希子¹, 中瀬 健太¹, 小瀧 弘正²

Hemispheric Disconnection Syndrome after Subarachnoid Hemorrhage with Hematoma in the Pericallosal Cistern

Takayuki MORIMOTO, M.D.¹, Kiyoshi NAGATA, M.D.¹, Yuuzi NIKAI, M.D.¹,
Hidemori TOKUNAGA, M.D.¹, Jun DEGUCHI, M.D.¹, Yukiko KOTANI, M.D.¹, Kenta NAKASE, M.D.¹,
and Hiromasa KOTAKI, S.T.²

¹Department of Neurosurgery, Nara City Hospital, and ²Department of Rehabilitation, Nara City Hospital, Nara, Japan

Summary: We present a rare case of callosal disconnection syndrome caused by rupture of an anterior communicating artery aneurysm (Acom AN). A 51-year-old man with a consciousness disturbance was transported to our hospital. Head computed tomography showed subarachnoid hemorrhage (SAH) associated with thick hematoma in the pericallosal cistern. Three-dimensional computed tomography angiography (3D-CTA) suggested that a forward-projected Acom AN was a potential source of the bleeding. We used a left pterional approach based on these findings. Neck clipping was performed according to the intraoperative finding that the source of the bleeding was a backward-projected Acom AN which could not be seen on 3D-CTA images. On awakening after surgery, the patient had a callosal disconnection syndrome. An Acom AN can rupture in the case of SAH associated with thick hematoma localized to the pericallosal cistern. Surgery should be based on consideration of this possibility in addition to that of a mechanism in which the Acom AN jets backward.

Key words:

- subarachnoid hemorrhage (SAH)
- disconnection syndrome
- anterior communicating artery aneurysm (Acom AN)

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 46: 71-75, 2018

はじめに

脳梁離断症候群は、脳梁を介した左右大脳半球間の連絡経路が断たれたことにより生じる種々の高次機能障害を特徴とし、脳血管障害、脳腫瘍、頭部外傷、あるいは、脳梁離断術などを原因とするとされている¹²⁾。今回、われわれは前交通動脈瘤(anterior communicating artery aneurysm: Acom AN)破裂によるくも膜下出血で脳梁周囲槽

に局限した厚い血腫を伴い、脳梁離断症候群を呈した症例を経験した。術前画像とは異なる術中所見が得られたことから、血腫形成の機序や症状・治療経過・術式の選択などについて考察を加えて報告する。

症 例

患 者: 51 歳, 男性.
主 訴: 意識障害.

¹市立奈良病院 脳神経外科, ²市立奈良病院 リハビリテーション科(受稿日 2016. 11. 4)(脱稿日 2017. 6. 6)[連絡先: 〒630-8305 奈良県奈良市東紀寺町 1-50-1 市立奈良病院 脳神経外科 森本堯之] [Address correspondence: Takayuki MORIMOTO, M.D., Department of Neurosurgery, Nara City Hospital, 1-50-1 Higashikidera-cho, Nara, Nara 630-8305, Japan]

Fig. 1 Head computed tomography (CT) on admission revealed subarachnoid hemorrhage more dominant in the pericallosal cistern and quadrigeminal cistern than in the supracerebellar cistern.

既往歴：高血圧，脂質異常症。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：自宅内の浴室で倒れていたところを家人に発見され，救急搬送となる。

入院時現症：意識レベルはGlasgow Coma Scale (GCS) 10 (E3V1M6) と軽度意識障害があり，運動性失語症も呈していた。

画像所見：頭部単純CTでくも膜下出血 (subarachnoid hemorrhage: SAH) を認め，脳梁周囲槽に長径 5.7 cm，横径 2.3 cm の紡錘状血腫を認め，四丘体槽，迂回槽にも及んでいた (**Fig. 1**)。また，3 dimensional computed tomographic angiography (3D-CTA) では前交通動脈 (anterior communicating artery: Acom) に前向きに突出する 3.4×2.2 mm の動脈瘤がみられた。この動脈瘤の向きと血腫の分布の関係性には疑問が残ったものの，前大脳動脈 (anterior cerebral artery: ACA) の遠位部やその他の部位に明らかな動脈瘤がなかったことから (**Fig. 2**)，Acom AN 破裂による SAH (WFNS grade IV, Fisher group III) と診断し，根治手術を行った。

手術所見：A2 が後方にある左側からの pterional approach により，脳動脈瘤ネッククリッピング術を施行した。両側 A1 を確保し，temporary clip をかけ，Acom 周囲を剥離すると，術前 3D-CTA 通りの前向き動脈瘤 (**Fig. 3A**) がみられ，これに対していったん Sugita mini clip をかけた。ただ，出血点は明らかではなかったために，後方

を確認したところ術前 3D-CTA では認められなかった動脈瘤成分がみられ，操作中に出血をきたした。本来の破裂点は，この後方成分からであると判断し，吸引で出血をコントロールしながら，動脈瘤の後方成分を含めるように，穿通枝に注意しながら深く Sugita straight clip をかけ直した (**Fig. 3B**)。

術後経過：day 8 に施行した脳血管造影検査 (**Fig. 4A**) では，脳血管攣縮や ACA 遠位部動脈瘤はなかった。術後，Japan Coma Scale (JCS) III-200 と意識障害は継続し，頭部CTで脳室拡大を認めた。day 11 に脳室ドレナージ術を施行したところ，意識レベルは幾分改善したために，day 23 に脳室-腹腔短絡術を施行した。day 25 より JCS I-3 と意識レベルは改善した。そこで詳細な神経所見を再度評価したところ，左手失書 (**Fig. 5**)，左手失行，触覚性呼称障害，拮抗失行を認めたことから脳梁離断症候群と診断した。day 38 に撮影した頭部CT (**Fig. 4C**)，day 56 に撮像した頭部MRI (**Fig. 4D, E**) では脳梁周囲槽に血腫が残存していたが，脳血管攣縮による新たな脳梗塞はなかった。day 72 の退院時には左手失書，左手失行が残存しており，modified Rankin Scale (mRS) 3 でリハビリテーションを目的とし，転院となった。発症から 18 カ月が経過した現在，当院外来へ通院しているが，脳梁離断症状は消失し，軽度の記憶力低下がみられるものの，ADL は自立している。

Fig. 2 Preoperative three-dimensional computed tomography angiography (3D-CTA) showed an anterior communicating artery aneurysm (Acom AN) projected forward (**A**, arrow); no distal anterior cerebral artery aneurysm was seen (**B**).

Fig. 3 Intraoperative microphotographs.

A/B
C/D

A: Through a left pterional approach to the surgical field, temporary clips were applied to the bilateral A1 segment of the anterior cerebral artery (ACA) and anterior communicating artery aneurysm (Acom AN, arrow); the Acom AN projected forward, as indicated by three-dimensional computed tomography angiography (3D-CTA).

B: A Sugita straight clip was applied, confirming the presence of the backward-projecting Acom AN (arrow).

C, D: Schema of operative views, before (**C**) and after (**D**) clipping.

Fig. 4 **A:** Day 8 postoperative angiography of the left internal carotid artery demonstrated no vasospasm. **B:** Postoperative three-dimensional computed tomography angiography (3D-CTA) on day 8 showed no residual neck. **C, D:** Computed tomography (CT) on day 38 and fluid-attenuated inversion recovery magnetic resonance imaging (MRI) on day 56 showed hematoma in the corpus callosum. **E:** Diffusion-weighted MRI on day 56 showed no infarction of the corpus callosum.

A|B Fig. 5 By day 56 after surgery, the patient's written production was normal using his right hand (**A**), whereas he displayed dysgraphia using his left hand to write from dictation (**B**).

考 察

脳梁離断症候群は脳梁が部分的あるいは完全に離断されることによって生じる症候群を指し、19世紀末に Bastian や Lipemann が提唱して以来、多数の報告がある¹⁾²⁾⁴⁾⁵⁾⁹⁾¹⁰⁾¹³⁾。

経過中に施行した各種画像検査にて脳血管攣縮や脳梗塞の所見を認めなかったことから、本症例で認めた脳梁離断症状は脳梁周囲槽の血腫の残存によるものと考え、その局在を前方中央幹(anterior midbody : AB)から後方中央幹(posterior midbody : PB)にかけて認めたために左手失

書、左手失行が残存したと考える⁸⁾。また、発症直後に GCS E3V1M6 と運動性失語症を認めていたことについては、脳梁離断症状の1つとしてプロソディー障害に関連して運動性失語症を認めることがあるとの報告がある³⁾¹¹⁾。プロソディー障害は脳梁前方部の損傷による症状であり⁸⁾、発症直後は脳梁周囲槽全域にわたって血腫を形成していた影響であると考えられる。その他、本症例において意識障害が遷延したが、Li ら⁷⁾は急性期脳梁離断症状として、意識障害を 10.1% に認めたと報告している。また、脳梁離断術の急性期症状として緘黙状態(mutism)、両側把握反射、両側 Babinski 徴候、左右が交代する焦点けいれん、軽度意識障害、幼時行動への退行などがみられるが、ほとんどなんの異常もみられなくなるのが普通である¹⁴⁾。

脳梁離断症候群を呈する疾患の中でも脳梁部に血腫を形成するものとしては、頭部外傷⁹⁾、動脈奇形⁵⁾、もやもや病²⁾、Marchiafava-Bignami 病⁴⁾、海綿状血管腫¹⁰⁾に多いとされる。しかしながら、脳梁部に血腫を形成する疾患の中でも動脈瘤破裂による脳梁離断症候群の報告は少なく⁶⁾、Levin ら⁶⁾の報告1例のみである。Levin らは右 ACA の脳梁周囲動脈分岐部動脈瘤破裂を原因とした脳梁離断症候群を報告しており、発症時の頭部 CT 画像は本症例と酷似していたが、後遺症としては左手失書、左手失行、左右手の協調運動障害がみられた。

今回の出血の分布については、後ろ向きの前交通動脈が破裂して後方へ噴出し、終板槽を經由して脳梁周囲槽全域に分布する厚い血腫を形成し、さらに一部は四丘体槽、迂回槽へ出血が及んだと考えられる。本症例ではなくも膜の癒着をきたすような minor leak を疑う病歴はなかったが、動脈瘤破裂の向きだけでなく、なんらかの原因で前方にくも膜の癒着があって、今回の血腫の分布を示した可能性も否定できないが、残念ながら術中にそれを確認できたわけではない。また、経過中の画像検査で脳梁そのものにはダメージがなく、脳梁離断症候群も1年後には消失していたことから、脳槽の厚い血腫が脳梁を圧迫していたために、一時的に離断症状を呈していたと思われる。

術式の選択については、術前の 3D-CTA で前向きの前交通動脈瘤しか発見できず、出血の分布との関係は、やや腑に落ちなかったものの、pterional approach を選択し、結果的にはクリッピングでき、良好な経過をたどった。しかし、この症例での経験をふまえて再考すると、前向きの前交通動脈瘤の破裂で、脳梁周囲槽から四丘体槽、迂回槽に及ぶ血腫を伴うくも膜下出血をきたすということに、もっと疑問をもってもよかったかもしれない。もし、前向きの前交通動脈瘤に破裂した形跡がなく、後方にも動脈瘤成分がなかった場合、遠位部 ACA に 3D-DSA で明らかな動脈瘤が潜んでいる可能性もある。今後、同様の出

血の分布を示した症例を治療する場合、3D-CTA、あるいは脳血管撮影を行って遠位部前大脳動脈瘤、前交通動脈瘤の両方の有無を念入りに確認し、動脈瘤の向きなどが後方へ噴出する機序と一致するかどうか、またそれらに疑問が残る場合、前交通動脈瘤、遠位部 ACA 動脈瘤の両方を確認できるような開頭で行う interhemispheric approach を選択することも、1つの考え方ではないかと思われる。

結 語

前交通動脈瘤破裂により脳梁周囲槽に厚い血腫を伴い、脳梁離断症候群を呈した1例を経験した。このような特徴的な血腫を形成する症例では、術前の画像検査を検討し、動脈瘤から後方に噴出する機序を考えて手術を行うことが重要である。

文 献

- 1) Alexander MP, Freedman M: Amnesia after anterior communication artery aneurysm rupture. *Neurology* 34: 752-757, 1984
- 2) Irikura K, Miyasaka Y, Kurata A, *et al*: A source of haemorrhage in adult patients with moyamoya disease: The significance of tributaries from the choroidal artery. *Acta Neurochir (Wien)* 138: 1282-1286, 1996
- 3) Ishizaki M, Ueyama H, Nishida Y, *et al*: Crossed aphasia following an infarction in the right corpus callosum. *Clin Neurol Neurosurg* 114: 161-165, 2012
- 4) Kamaki M, Kawamura M, Moriya H, *et al*: Callosal bleeding in a case of Marchiafava-Bignami disease. *J Neurol Sci* 136: 86-89, 1996
- 5) Leiguarda R, Starkstein S, Berthier M: Anterior callosal haemorrhage. Anterior callosal haemorrhage: a partial interhemispheric disconnection syndrome. *Brain* 112: 1019-1037, 1989
- 6) Levin HS, Goldstein FC, Goldstein SY, *et al*: Hemispheric disconnection syndrome persisting after anterior cerebral artery aneurysm rupture. *Neurosurgery* 21: 831-838, 1987
- 7) Li S, Sun X, Bai YM, *et al*: Infarction of the corpus callosum: a retrospective clinical investigation. *PLoS One* 10: e0120409, 2015
- 8) 大槻美佳：脳梁および近傍領域損傷による高次脳機能障害。脳外誌 18: 179-186, 2009
- 9) Muccio CF, De Simone M, Esposito G, *et al*: Reversible post-traumatic bilateral extensive restricted diffusion of the brain. A case study and review of the literature. *Brain Inj* 23: 466-472, 2009
- 10) Reyns N, Assaker R, Louis E, *et al*: Intraventricular cavernomas: three cases and review of the literature. *Neurosurgery* 44: 648-654, 1999
- 11) Saba S, Blum S: Aphasia due to isolated infarction of the corpus callosum. *BMJ Case Rep* 2014, doi: 10.1136/bcr-2014-204316
- 12) 田川皓一：脳卒中症候学。新潟，西村書店，2010，pp811-821
- 13) 玉川 聡，橘 智弘，赤松直樹，ほか：脳梁梗塞により脳梁離断症候群を呈した1例。認知神経科学 3: 26-28, 2001
- 14) Wilson DH, Reeves A, Gazzaniga M: Division of corpus callosum for uncontrollable epilepsy. *Neurology* 28: 649-653, 1978