症 例

後下小脳動脈の血行再建と近位側閉塞で治療した 出血発症椎骨動脈解離性動脈瘤の2症例

中村 道夫, 宮崎 格, 布瀬 善彦, 足立 明彦
米山サーネキー智子, 尾崎 航

Successful Treatment of Ruptured Dissecting Vertebral Artery Aneurysms through Proximal Occlusion of the Vertebral Artery along with Reconstruction of the Posterior Inferior Cerebellar Artery: Two Case Reports

Michio NAKAMURA, M.D., Ph.D., Tadashi MIYAZAKI, M.D., Yoshihiko FUSE, M.D.,
Akihiko ADACHI, M.D., Ph.D., Tomoko YONEYAMA-SARNECKY, M.D., Ph.D., and Koh OZAKI, M.D.

Department of Neurosurgery, Narita Red Cross Hospital, Narita, Chiba, Japan

Summary: We report two cases of ruptured dissecting aneurysms of the vertebral artery (VA) involving the origin of the posterior inferior cerebellar artery (PICA), which were successfully managed through proximal occlusion (PO) of the VA and PICA along with reconstruction of the PICA. Case 1: A 43-year-old male presented with subarachnoid hemorrhage (SAH) that was caused by a PICA-involved type of VA dissection. A PO along with the reconstruction of the PICA was performed because a massive and hard hematoma involving the lower cranial nerves (LCN) prevented the distal end of the dissection from being secured safely. Case 2: A 54-year-old male presented with SAH that was caused by a PICA-involved type of VA dissection was operated upon with this method because the anterior spinal artery (ASA) originating at the end of the dissection made it difficult to trap the entire lesion without compromising the ASA. Both patients eventually recovered without ischemic complications or LCN palsy (LCNP). Postoperative computed angiography demonstrated the disappearance of the dissection and good patency of the bypass.

Although trapping of the entire lesion along with the reconstruction of the PICA is the first line of surgical management for PICA-involved type of VA dissections, high frequency of LCNP, and ischemic complications in the brain stem have been reported. PO with the reconstruction of the PICA is an effective alternative in cases with a high risk of LCNP or ischemic complications.

Key words:

- vertebral artery dissection
- subarachnoid hemorrhage
- posterior inferior cerebellar artery
- proximal occlusion
- anterior spinal artery

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 49: 401-407, 2021

はじめに

出血発症の椎骨動脈解離性動脈瘤(vertebral artery dissecting aneurysm : VADA)の中で、後下小脳動脈(posterior inferior cerebellar artery : PICA)が解離部から分岐する PICA involved type VADA の治療では、バイパス併用による PICA の温存と解離部の trapping を有効とする報告が多い¹⁰⁾¹²⁾¹³⁾。一方で、trapping に伴う椎骨動脈(vertebral artery : VA)穿通枝梗塞や、手技に伴う下位脳神経麻痺(lower cranial nerve palsy : LCNP)が高頻度に報告され、ADL が低下する要因となる³⁾⁵⁾¹⁰⁾¹⁵⁾。われわれは、解離の盲端化を意図した解離近位側 VA の閉塞(proximal occlusion : PO)と PICA の閉塞、後頭動脈(occipital artery : OA)-PICA bypass による血行再建で、虚血性合併症や LCNP の合併なく根治した 2 症例を経験した。その手技の有用性と問題点を検討し、文献的考察を加えて報告する。

症 例

〈Case 1〉 43 歳、男性。

主訴：頭痛。

来院時意識：Glasgow Coma Scale(GCS) 12(E2 V4 M6)。

画像所見：computed tomography(CT)で後頭蓋窩を中

心にくも膜下出血(subarachnoid hemorrhage : SAH)を認めた(**Fig. 1A**)。CT angiography(CTA)では右 VA の紡錘状の膨隆と、膨隆の起始部から PICA の分岐を認め(**Fig. 1B, C**)、PICA involved type VADA と診断した。

手術所見：Day 0 に手術を行った。hockey stick incision で皮弁を作成し、OA を確保した。解離の遠位端を確保しやすいように、transcondylar fossa approach(TCFA)とした。VA の硬膜入口部から遠位に向かうと、PICA の分岐手前から色調の変化と膨隆を認めた(**Fig. 2A**)。解離の近位側 VA を clip で閉塞し、PICA の caudal loop に OA-PICA bypass を行った(**Fig. 2B**)。厚く固い血腫の中に下位脳神経を認め、解離遠位端を露出する際の下位脳神経損傷を懸念し、VADA の盲端化で治癒を期待した。PICA 起始部を clip で閉塞し、その場で 15 分ほど動脈瘤の膨隆や再出血のないことを確認した(**Fig. 2C**)。indocyanine green(ICG)蛍光造影で OA-PICA bypass の開存と、PICA の anterior medullary segment(AMs)までの逆行性造影を認めた(**Fig. 2D**)。

術後経過：術後 24 時間は静脈麻酔で鎮静し、血圧の管理を厳重に行った。術後 CT で小脳・脳幹梗塞を認めなかった(**Fig. 3A**)。一過性の腎不全を合併したため造影剤使用を控え、14 日目まで軽度の鎮静を行った。腎機能の

Fig. 1 **A**: Computed tomography on admission demonstrated thick subarachnoid hemorrhage in the posterior fossa.
B: Computed tomography angiography demonstrated the right vertebral artery dissecting aneurysm (VADA) (arrow).
C: The posterior inferior cerebellar artery originated at the beginning of the VADA (arrow).

Fig. 2 Intraoperative photographs of Case 1.

A: The dissecting aneurysm of the right vertebral artery (VADA) involved the origin of the posterior inferior cerebellar artery (PICA).
arrow: beginning of the VADA. arrowhead: origin of the PICA, double arrows: caudal loop of the PICA

B: Completion of the occipital artery (OA)-PICA bypass.
arrow: OA, arrowhead: PICA

C: Both the proximal VA and the origin of the PICA were clipped.
arrow: clip on the VA, arrowhead: clip on the PICA

D: Indocyanine green angiography demonstrated the patency of the OA-PICA bypass.
arrow: retrograde filling of the anterior medullary segment (AMs) of the PICA, suggesting preservation of the perforators from the AMs

改善した21日目にCTAで評価し、VADAの盲端化とOA-PICA bypassの良好な開存を認めた(**Fig. 3B**)。神経脱落症状は認めなかったが、Terson症候群による視力障害を後遺し、modified Rankin Scale(mRS)2で自宅退院した。

〈Case 2〉 54歳、男性。

主訴：意識障害。

来院時意識：GCS 13(E3 V4 M6)。

画像所見：CTで後頭蓋窩中心にSAHを認めた(**Fig. 4A**)。CTAでは右VAに紡錘状の膨隆と、病変部からPICAの分岐を認めた(**Fig. 4B**)。digital subtraction angiography(DSA)では、解離の終末部位にanterior spinal ar-

tery(ASA)の分岐を認めた(**Fig. 4C**)。左椎骨動脈写では、ASAを確認できなかった。

手術所見：Day 2に手術を行った。DSAで解離の終末部にASAが分岐するためtrappingは困難と判断し、POでASAを温存する方針とした。術中破裂をした際に速やかにtrappingに移行できるように、TCFAで開頭した。VAの硬膜入口部から頭側に向かうと解離が確認され、近位側VAを遮断した(**Fig. 5A**)。PICAのlateral medullary segment(LMs)にOA-PICA bypassを行い、吻合部より近位側のLMsでPICAを遮断した(**Fig. 5B**)。ICG蛍光造影でbypassの開存とLMsからの脳幹穿通枝の温存を確認した(**Fig. 5C, D**)。

術後経過：術後24時間は静脈麻酔で鎮静し血圧の嚴重

A|B

Fig. 3 A: Postoperative computed tomography demonstrated no obvious cerebellar infarction or cerebellar contusion.

B: Postoperative computed tomography angiography demonstrated a retrograde filling of the right vertebral artery (VA) distal to the dissection.

arrow: VA distal to the dissection, arrowhead: occipital artery posterior inferior cerebellar artery bypass

A|B|C

Fig. 4 A: Computed tomography on admission demonstrated thick subarachnoid hemorrhage in the posterior fossa.

B: Computed tomography angiography demonstrated the posterior inferior cerebellar artery (PICA)-involved type of dissecting aneurysm of the right vertebral artery.

arrow: origin of the PICA

C: Digital subtraction angiography demonstrated the anterior spinal artery (arrow) originating at the end of the dissection.

Fig. 5 Intraoperative photographs of Case 2.

A | **B**
C | **D**

A: The vertebral artery was clipped just proximal to the dissection.

B: The lateral medullary segment (LMS) of the posterior inferior cerebellar artery (PICA) was clipped after completion of the occipital artery (OA)-PICA bypass.

arrow: OA, arrowhead: clip on the PICA, double arrows: a perforator branching from the PICA

C, D: indocyanine green angiography after proximal clipping of the VA and the PICA, along with OA-PICA bypass.

arrow: the PICA, arrowhead: OA, double arrows: a perforator branching from the PICA

な管理を行った。24時間後のCTAでVADAの盲端化を確認後、鎮静を解除した。術後14日目に行った左椎骨動脈写でASAは温存されていたが、動脈瘤の一部残存と、PICAのAMsまでの逆行性造影を認めた(**Fig. 6A**)。術後30日目のCTAでVADAは縮小し、遠位端のみの造影となったため(**Fig. 5B**)、追加治療は行わなかった。軽度の筋力低下を認めたが、神経脱落症状なくmRS 2で自宅退院した。

考 察

出血発症のVADAは早期に再出血をきたす可能性が高く、救命のために早急な再出血予防治療が必要となる¹⁰⁾¹⁵⁾。近年、血管内治療の普及で多くはコイル塞栓によるinternal trappingが行われ²⁾³⁾⁶⁾、迅速な治療が可能となった。その一方でPICA involved type VADAに対しては、同側

のanterior inferior cerebellar artery(AICA)や健側のPICAからの側副血行が不十分な場合、internal trappingのみでは小脑梗塞やPICAからの脳幹穿通枝梗塞をきたす可能性が高い¹⁾¹⁰⁾。PICA領域への側副血行の評価はballoon閉塞試験で可能だが²⁾、出血の超急性期は、患者の容体も安定せず困難が予想される¹¹⁾。一方、PICAを閉塞しない単純なPOは、対側VAからのreverse flowにより解離腔は盲端化せず、再出血の可能性もある¹³⁾。したがって、本疾患の急性期治療では、PICAの血行再建を併用した解離腔の完全閉鎖が望ましい¹⁰⁾¹²⁾¹³⁾。本疾患において、trappingは直後から根治が得られる反面、手技に伴うLCNPの合併が35-50%と高率に報告される⁵⁾¹²⁾¹⁵⁾。その多くは、解離遠位端を確保するために行う血腫除去や剥離操作が原因となる¹²⁾。また、脳腫脹が強い急性期では、小脳への過剰な牽引による小脳挫傷も起こり得る。中畠ら¹²⁾

Fig. 6 **A:** Digital subtraction angiography 14 days after the operation. The late arterial phase of the left vertebral angiogram demonstrated preservation of the anterior spinal artery (ASA) branching at the end of the vertebral artery dissecting aneurysm (VADA), while the anterior medullary segment (AMs) of the posterior inferior cerebellar artery (PICA) was seen with the remnant of the VADA. arrow: ASA, double arrows: retrograde filling of the AMs of the PICA, arrowhead: remnants of the VADA
B: Computed tomography angiography 30 days after the operation demonstrated a small remnant of the VADA and the patency of the occipital artery (OA)-PICA bypass. arrow: OA-PICA bypass, arrowhead: small remnant of the VADA

は、あえて遠位端をとらず、PO と OA-PICA bypass, PICA 近位側の閉塞による盲端化で、再出血や手技による合併症なく良好な経過を得た4症例を報告し、下位脳神経周囲の剥離を必要とせず、最小限の牽引で手技を完結する本法の有用性を報告した。われわれの経験では、trapping を目的に手術を行った症例1で、固い血腫に巻き込まれた下位脳神経の損傷を危惧してPOを選択した。症例2は、解離部からASAの分岐を認め、脊髄梗塞を回避するため当初からPOを選択した。Kadoら³⁾は、VADAの血管内塞栓術において、ASAへのflow outが温存された症例では、解離遠位への血栓化が抑えられ、VAの穿通枝梗塞が回避されたと報告している。症例2でもASAの温存が同様な効果をもたらし、VAの穿通枝梗塞を予防した可能性がある。一方で本症例では、PICAの閉塞をLMsで行ったためAMsへの逆行性血流が一定期間残存し、解離の消失までに時間を要した。PICAからの脳幹穿通枝はAMs, LMs, telelevelomedullary segmentまでの前半に存在する⁸⁾。これらの穿通枝をバイパス血流で温存し、かつ早期から解離の盲端化を得るためには、PICA起始部を露出して閉塞

すべきであった。

trappingに比較して、POの根治性には議論が多い。山浦らの頭蓋内解離性血管病変の全国調査¹⁵⁾では、開頭術によるPOがVADAの外科的治療の約4割を占め最も多かったが、PO後の再出血も症例報告レベルで認められた。安井ら¹⁶⁾は、PICAを含まないVADAで、盲端化後に再出血した1例の経験と文献報告3例を検討し、3例は盲端化の完成から0-4時間(平均1.7時間)の超早期に再出血をきたしたとしている。また、PO直後にVADAの緊満膨隆を認めた症例もあり、術中に形態の変化を認めた場合は速やかにtrappingに移行する必要があるとしている¹⁶⁾。したがって、術直後の管理も、鎮静を含めた血圧の厳重なコントロールと、術後早期に盲端化の状態を画像で評価することが望ましい¹³⁾。

TCFAやtranscondylar approachは、椎骨動脈遠位から脳底動脈下端まで確保し得る頭蓋底手技であり、椎骨動脈系動脈瘤の直達術において小脳の牽引を軽減し、下位脳神経の保護のためにも有用である^{7,9)}。POを意図した手術でも、術中破裂に備えて解離の遠位端が速やかに確保でき

るように併用すべき手技と考える。

近年、PICA involved type VADA に対して、頭蓋内ステントを利用した血管内治療が報告されている⁴⁾。しかし、塞栓性合併症や術中破裂、抗血小板剤使用に伴う出血性合併症などの問題に加えて¹⁴⁾、わが国では出血発症例に保険収載されておらず、直達手術の役割は依然大きい。PICA involved type VADA に対して PICA の血行再建を併用した解離の盲端化は、trapping に伴う虚血性合併症や LCNP が強く懸念される場合に、それらを回避しつつ根治が期待できる有効な治療 option と考えられた。

結 語

解離の盲端化と PICA 血行再建により良好な経過を得た出血発症 PICA involved type VADA の 2 症例を経験した。本法は trapping に伴う合併症を軽減するための治療選択肢となり得る。

本論文に関して、開示すべき COI はない。

文 献

- 1) Chalouhi N, Jabbour P, Starke RM, *et al*: Endovascular treatment of proximal and distal posterior inferior cerebellar artery aneurysms. *J Neurosurg* 118: 991-999, 2013
- 2) Iihara K, Sakai N, Murao K, *et al*: Dissecting aneurysm of the vertebral artery: a management strategy. *J Neurosurg* 97: 259-267, 2002
- 3) Kado K, Hirai S, Kobayashi S, *et al*: Potential role of the anterior spinal artery in preventing propagation of thrombus in a therapeutically occluded vertebral artery: angiographic studies before and after endovascular treatment. *Neuroradiology* 44: 347-354, 2002
- 4) Kim MJ, Chung J, Kim SL, *et al*: Stenting from the vertebral artery to the posterior inferior cerebellar artery. *AJNR Am J Neuroradiol* 33: 348-352, 2012
- 5) Kitanaka C, Sasaki T, Eguchi T, *et al*: Intracranial vertebral artery dissections: clinical, radiological features, and surgical considerations. *Neurosurgery* 34: 620-627, 1994
- 6) Kudo T, Iihara K, Satow T, *et al*: Incidence of ischemic complications after endovascular treatment for ruptured dissecting vertebral artery aneurysms. Comparison between those arising proximal to and distal to the origin of the posterior inferior cerebellar artery. *Interv Neuroradiol* 13(Suppl 1): 157-162, 2007
- 7) Liew D, Ng PY, Ng I: Surgical management of ruptured and unruptured symptomatic posterior inferior cerebellar artery aneurysms. *Br J Neurosurg* 18: 608-612, 2004
- 8) Lister JR, Rhoton AL Jr, Matsushima T, *et al*: Microsurgical anatomy of the posterior inferior cerebellar artery. *Neurosurgery* 10: 170-199, 1982
- 9) Matsushima T, Natori Y, Katsuta T, *et al*: Microsurgical anatomy for lateral approaches to the foramen magnum with special reference to transcondylar fossa(supracondylar transjugular tubercle) approach. *Skull Base Surg* 8: 119-123, 1998
- 10) 水谷 徹: 解離性脳動脈瘤に対する手術適応と術式. 脳卒中の外科 30: 424-428, 2002
- 11) 毛利正直, 飯原弘二, 村尾健一, ほか: PICA-involved type の破裂椎骨動脈瘤に対する急性期治療—PICA 灌流領域からの検討. 脳卒中の外科 37: 87-92, 2009
- 12) 中畠教夫, 佐藤 徹, 村尾健一, ほか: 破裂椎骨動脈解離性動脈瘤に対する治療戦略. The Mt Fuji Workshop on CVD 29: 58-62, 2011
- 13) 小野純一, 樋口佳則, 町田利生, ほか: くも膜下出血で発症した椎骨脳底動脈系の頭蓋内解離性動脈病変の検討—病態および外科的治療成績. 脳卒中の外科 35: 124-129, 2007
- 14) 須磨 健, 渋谷 肇, 高田能行, ほか: 破裂椎骨動脈瘤に対する急性期ステント併用コイル塞栓術. *Neurosurg Emerg* 16: 53-58, 2011
- 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2報). 脳卒中の外科 26: 87-95, 1998
- 16) 安井敏裕, 岸 廣成, 小宮山雅樹, ほか: 破裂椎骨動脈瘤に対する近位側閉塞後の再破裂機序. *No Shinkei Geka* 28: 345-349, 2000