原 著

一側破裂脳動脈瘤を合併した両側性 persistent primitive hypoglossal arteries の手術例

村山 佳久, 岡 博文, 藤本 尚己,*松本 圭蔵*

Bilateral Persistent Primitive Hypoglossal Arteries Associated with a Large Ruptured Aneurysm on One Side

Yoshihisa MURAYAMA, M.D., Hirofumi OKA, M.D., Naomi FUJIMOTO, M.D.*, and Keizo MATSUMOTO, M.D.*

Department of Neurological Surgery, Miyoshi Hospital, and *Department of Neurological Surgery, School of Medicine, The University of Tokushima, Japan

Summary: Bilateral persistent primitive hypoglossal arteries (PPHA) associated with multiple aneurysms in a 59-year-old man are reported in this paper. Angiography of the left carotid artery revealed a PPHA on this side with a large aneurysm located at the junction of the basilar artery. This PPHA arose from the left internal carotid artery at the level of the C-2 vertebra. Right retrograde vertebral arteriography showed a PPHA and a small aneurysm at the trifurcation of the right middle cerebral artery. The necks of these aneurysms were successfully clipped. This seems to be the first case of bilateral PPHA associated with multiple aneurysms.

Key words:

- persistent primitive hypoglossal artery
- multiple aneurysm
- subarachnoid hemorrhage

はじめに

persistent primitive hypoglossal artery (PPHA) は、内頸動脈と脳底動脈あるいは椎骨動脈と吻合する異常遺残動脈の1つである。現在までに多くの臨床例や剖検例が報告されているが、これらはすべて一側性であり、両側性 PPHA は、剖検例でただ1例の報告をみるだけである。われわれは、両側性 PPHA に、多発脳動脈瘤を合併した症例を経験し治療せしめたので、臨床経過、脳血管撮影所見を報告するとともに、若干の考察をのべる。

症 例

〈患者〉 59歳、男性。

主 訴：頭痛、嘔吐。

家族歴、既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：1984年2月5日、工作中、突然激しい頭痛と嘔

吐をきたし、クモ膜下出血の疑いで入院した。

入院時所見：意識は傾眠状態で、激しい頭痛と嘔吐を認めた。神経学的には強い項部硬直以外、異常は認められなかった。

入院時検査所見：CT scan では basal cistern と第3脳室に高吸収域を認め、クモ膜下出血の所見を示した。検査後、突然昏睡状態に陥ったため脳室ドレナージを行った。数日後、意識状態も回復し、神経学的には項部硬直、眼振、嚥声を認めた。

脳血管撮影所見：左頸動脈撮影で PPHA、脳底動脈と PPHA との吻合部に嚢状動脈瘤を認めた (Fig. 1)。この PPHA は、C₂ レベルで内頸動脈から分岐していた。左後交通動脈は aplastic であった。左逆行性椎骨動脈撮影では、椎骨動脈は hypoplastic であった (Fig. 2)。右逆行性椎骨動脈撮影では hypoplastic PPHA と右中大脳動脈に嚢状動脈瘤を認めた (Fig. 3)。右後交通動脈は aplastic であった。

Fig. 1 a: Lateral view of angiography of the left common carotid artery demonstrating the persistent hypoglossal artery (small arrow) and saccular aneurysm (large arrow). Posterior communicating artery is aplastic. b: Anteroposterior view demonstrating the persistent hypoglossal artery (small arrow) and aneurysm (large arrow).

Fig. 2 Lateral view of left retrograde vertebral angiography demonstrating the hypoplastic vertebral artery (arrow).

手術所見, 術後経過: 発作後は, 保存的療法を行い症状の改善をみた。12日目には再度脳血管撮影を行ったが, 動脈瘤に変化はなく, 血管攣縮の所見も認められなかった。発作30日目に左後頭窩開頭術を行った。PPHA と脳底動脈吻合部に嚢状動脈瘤を認めた。動脈瘤嚢部は小脳半球と癒着しており, 術中所見よりもクモ膜下出血は明らかであり, これが破裂動脈瘤と判断した。動脈瘤基部, 嚢部を露出し杉田の large clip をかけた。脳底動脈の patency は良

好であった。術後経過も順調で, 術後脳血管撮影によりネッククリッピングは完全で, PPHA の血流は完全に保たれていることが確認できた (Fig. 4)。40日目には右前頭側頭開頭により中大脳動脈瘤のネッククリッピングを行った。この手術所見では, Sylvian fissure 内にも出血の所見が認められ, 中大脳動脈瘤の破裂した可能性も考えられたが, 確定はできなかった。術後一過性に尿路感染症をきたしたこと以外は順調であり, 脳室拡大の所見もなく, 軽い嘔声を残したのみで独歩退院した。

考 察

Batujeff¹⁾ が, 1889年に PPHA の剖検例を最初に発表して以後, 1950年には Lindgren⁷⁾ が, 脳血管撮影上 PPHA を報告し, 以後多くの例が報告されている。平原らは, これまでに報告された脳動脈瘤を合併した一側性 PPHA 20症例の検討を行っている⁴⁾。これによると, 動脈瘤と PPHA が同側に存在するものは13例であり, 5例は反対側であった。また PPHA 自体あるいは PPHA と脳底動脈吻合部に脳動脈瘤を認めたのは5例にすぎない²⁾³⁾⁵⁾⁸⁾¹⁰⁾。また PPHA に多発脳動脈瘤を合併した例は2例のみであった。大西ら⁹⁾ は, クモ膜下出血をきたした両側性 PPHA の剖検例を報告しているが, この例では脳血管撮影上も病理学的所見からも出血の原因は不明であった。われわれが調べた限りでは, 多発脳動脈瘤を合併した両側性 PPHA の臨床報告例はないと思われる。

Lie⁶⁾ は, 解剖学的, 脳血管撮影上の PPHA の4つの条件を示している。a) PPHA が, C₁₋₃ レベルから分岐す

Fig. 3 **a:** Lateral view of right retrograde vertebral angiography demonstrating a small hypoplastic hypoglossal artery (*small arrows*). Posterior inferior cerebellar artery is denoted the open arrow. Right posterior communicating artery is aplastic. Right vertebral artery is hypoplastic (*double arrows*). **b:** Anteroposterior view demonstrating the persistent hypoglossal artery (*small arrows*) and middle cerebral artery aneurysm (*triangle*). Right vertebral artery (*double arrows*) and posterior inferior cerebellar artery (*open arrow*) are shown. **c:** Right vertebral artery (*double arrow*) is hypoplastic.

Fig. 4 **a, b:** Postoperative angiography of the left common carotid artery demonstrating the complete clipping of the neck of the aneurysm, and good flow in the persistent hypoglossal artery and basilar artery.

る。b) anterior condyloid foramen (hypoglossal canal) を通って頭蓋内へ入る。c) 脳底動脈は PPHA が流入する部位からのみ造影される。d) 後交通動脈は aplastic である。われわれの症例はこの条件を満足する典型的な両側性の PPHA であった。

この脳動脈瘤手術にあたり、椎骨動脈と後交通動脈が、aplasic, hypoplastic であるため、PPHA、脳底動脈の血

流を完全に保つようネッククリッピングを行うことに、特に注意した。

ま と め

1. 一側に破裂動脈瘤を認めた両側性 persistent primitive hypoglossal arteries のまれな 1 例を経験し治癒せしめたので、若干の文献的考察を加えて報告した。

2. 手術にさいし、椎骨動脈が hypoplastic, 後交通動脈が aplastic であるため, PPHA, 脳底動脈の血流温存をはかることが重要である.

文 献

- 1) Batujeff E : Eine seltene Arterienanomalie (Ursprung der A. basilaris aus der A. carotis interna). *Anat Anz* **4** : 282-285, 1889
- 2) Bohmafalk GL, Story JL : Aneurysms of the persistent hypoglossal artery. *Neurosurgery* **1** : 291-296, 1977
- 3) Drake CG : The surgical treatment of vertebral basilar aneurysms. *Clin Neurosurg* **16** : 114-168, 1968
- 4) 平原一穂, 朝倉哲彦, 上津原甲一 : Persistent primitive hypoglossal artery を伴った脳動脈瘤の1例. *脳神経外科* **9** : 197-202, 1981
- 5) Huber P, Rivor R : Aneurysms on a persistent left hypoglossal artery. *Neuroradiology* **6** : 277-288, 1974
- 6) Lie TA : Primitive Hypoglossal Artery. In congenital anomalies of the carotid arteries, Excerpta Medica Foundation, Amsterdam, 1968, pp 76-83
- 7) Lindgren E : Percutaneous angiography of the vertebral artery. *Acta Radiol (Stockh)* **33** : 389, 1950
- 8) 大原宏夫, 佐藤 壮, 児玉南海雄, 鈴木二郎 : Primitive Hypoglossal Artery を伴った脳動脈瘤の2手術治験例. *脳と神経* **25** : 483-488, 1973
- 9) 大西英之, ほか : Bilateral persistent primitive hypoglossal artery — 1 剖検例の報告と両側性遺残に対する発生学的考察 —. *北野病院紀要* **21** : 135-140, 1976
- 10) Udvarhelyi GB, Lai M : Subarachnoid hemorrhage due to rupture of an aneurysm on a persistent left hypoglossal artery. *Br J Radiol* **36** : 843-847, 1963