組織学的に解離性動脈瘤と思われる dolichoectatic basilar artery の 1 例

岸口 稔睦, 山田 和雄, 伊藤 守*
種子田 護, 早川 徹

Histopathological Analysis of Dolichoectatic Basilar Artery

Toshinobu KISHIGUCHI, M.D., Kazuo YAMADA, M.D., Mamoru ITO, M.D.,*
Mamoru TANEDA, M.D., and Toru HAYAKAWA, M.D.

Departments of Neurosurgery: Osaka University Medical School, Osaka, and

**Teramoto Memorial Hospital, Osaka, Japan*

Summary : A case of dolichoectatic basilar artery with a mass effect to the brainstem structure was treated by reducing hemodynamic stress. In this case, angiograms showed the dolichoectatic basilar artery creating a turbulent flow in the vertebrobasilar junction. We therefore clipped the unilateral vertebral artery and performed posterior fossa decompression. The postoperative course was uneventful. Two years and 6 months after the operation, the patient died due to multiple brain stem infarction as a result of involvement of many important perforating arteries to the brainstem. Proximal ligation of the right vertebral artery resulted in reduction of turbulent flow but caused intraaneurysmal thrombosis.

Macroscopic examination showed distention and elongation of the vertebrobasilar artery like dolichoectasia, and microscopic examination revealed dissection of the vessels between the intima and medial smooth muscle. We therefore conclude that dolichoectasia of this case was caused by dissection of the basilar artery.

Key words :

- dolichoectasis
- dissecting aneurysm
- basilar artery
- histopathology

はじめに

dolichoectatic basilar artery は解離性動脈瘤の一種ではないかと考えられており、最近 MRI の画像解析を行った論文¹⁰⁾でもこれを支持する所見が得られている。最近、脳底動脈 dolichoectasia の 1 剖検例を経験したが、組織学的に解離の所見を呈した。これは dolichoectasia の発生機構を示唆すると思われるので報告する¹⁰⁾。

症 例

本例の臨床経過については症例報告の一部として報告しているが⁹⁾、再度簡潔に記載する。

患者は 46 歳、男性で 2 年前より高血圧症の既往を持っていた。また 1 年前よりめまい、浮遊感、不安感があった。入院時の陽性神経学的所見としては、右不全麻痺と右動眼神経および外転神経麻痺を認めた。入院時の神経放射線学的所見としては、CT scan で pons および prepontine cist-

ernに強く均一に造影される病変を示した(Fig. 1A). 同様にMRIのT₂強調画像でhigh intensityの所見を呈した(Fig. 1B). 両側椎骨動脈撮影では脳底動脈起始部より拡張, 蛇行が見られ, 血管径の小さい右椎骨脳底動脈撮影で脳底動脈瘤の乱流パターンを認めた(Fig. 1C, D). “pearl and string sign”や“double shadow”は認められなかった. 乱流の低減をはかるため後頭蓋窩開頭の上, 右後下小脳動脈の遠位部で椎骨動脈をクリッピングした. 術後経過は良好で症状の軽快を示し, 術後6か月後の左椎骨動脈撮影では血管径の縮小を認めた. しかし, その後動脈瘤内の血栓によると思われる脳幹穿通枝領域の梗塞が頻発するようになり, 2年6か月後に死亡, 剖検となった.

方 法

剖検時, 脳底動脈は肉眼的に起始部より拡張を認め主要分枝はこの拡張部より出ていた. そこで標本をFig. 2に示す5か所で切片に分け, パラフィン包埋の上, それぞれの部位で6μm切片を作成した. 次いでこれをH. E. 染色, Reticulin 染色および抗平滑筋アクチン抗体とVectastain ABC-Elite Kitsを用いた免疫染色に供し, 各組織所見を検討した.

組 織 所 見

解離はFig. 3のReticulin 染色でみられるように脳底動脈起始部の拡張起始部で内膜の断裂(intimal tear)が起こっている部分から始まっていた(Fig. 3A). 偽腔(false lumen)は抗平滑筋抗体を用いた免疫染色でみられるように内膜と中膜の間に形成され, 中膜筋層に及んでいるが, 外膜に及ぶ所見はなかった(Fig. 3B). dolichoectasiaの中間部ではH. E. 染色で, 内膜および内弾性板の変性, 消失を認め中膜筋層の解離は内膜側に認め(Fig. 4A), 特に内膜側の中膜平滑筋は外膜側と比べ, 抗平滑筋抗体による免疫染色で染色される細胞が少なく, 断裂, 変性の所見を呈していた(Fig. 4B). またこの部では解離腔内に血腫が形成されており, 内膜側は血腫によって真腔(true lumen)を圧排した形態を示していた. この狭窄の所見は近位部より遠位端で強く認められた. また, 拡張部遠位端は再入口部の形態は認めず, 解離腔は中膜筋層で盲端となっていることが抗平滑筋免疫染色からも確められた(Fig. 5).

肉眼的にはdolichoectatic basilar arteryの所見を呈しているが, 組織学的にはintimaとmediaの間で解離を呈する解離性動脈瘤であることが示唆される.

Fig. 1 A computed tomographic scan showed a strongly enhanced mass lesion (arrows) in the right lateral aspect of the pons and widening of the prepontine cistern. B: T₂-weighted MRI showing high signal intensity mass (arrows) in the prepontine cistern. C: Lateral view of right vertebral angiogram (VAG). D: Lateral view of left VAG. Bilateral vertebral angiograms showed an enlarged, tortuous basilar artery, relatively small right vertebral artery, and a turbulent flow in the dilated vertebrobasilar junction caused by blood supply from the right vertebral artery.

Fig. 2 Macroscopic finding showed distention and elongation of the vertebral artery like dolichoectasia. Parts of cutting was shown in number from one to five (arrows).

Fig. 3 Photomicrograph of the proximal basilar artery at the beginning of dolichoectasia (Fig. 2, arrow 5). Histological findings showed intimal tear (arrow) and the false lumen with hematoma (arrow heads) between the intima and the media. this intima is absent from internal elastic lamina. A: Reticulin stain, $\times 100$; B: Anti-smooth muscle actin antibody immunostain, $\times 100$.

考 察

脳血管の屈曲蛇行や拡張は比較的古来な状態で、Sacks と Lindenberg らによってはじめて dolichoectasia と名づ

Fig. 4 Histological findings at the middle part of dolichoectasia (Fig. 2, arrow 3) showed the false lumen with hematoma (*) and degeneration of the media (arrow heads). A: H-E stain, $\times 100$; B: Anti-smooth muscle actin antibody immunostain, $\times 100$.

Fig. 5 Histological findings of the dolichoectasia at the distal end with hematoma (arrow heads) (Fig. 2, arrow 1) showing that there is no evidence of re-entry. A: Reticulin stain, $\times 200$; B: Anti-smooth muscle actin antibody immunostain, $\times 100$.

けられた¹²⁾。好発部位は椎骨脳底動脈と内頸動脈で、症状としては、破裂することはまれで、穿通枝出口の閉塞による虚血症状か、圧迫症状を示すことが多いとされている¹⁴⁾。病理学的には、若年者では血管壁の内弾性板と筋層が広範囲に欠損しているものが多い。一方高齢者では著明な arteriosclerosis がみられ、血管の拡張の原因とはなっているが、必ずしも arteriosclerosis が基盤とはなっていない例も見られる⁸⁾。解離性動脈瘤ないし解離性狭窄や閉塞は頸部、および頭蓋内では内頸動脈、中大脳動脈、椎骨脳底動脈に発生し、脳梗塞をきたすことも少なくない。また椎骨脳底動脈に発生するものはクモ膜下出血で発生するものもある⁴⁾⁵⁾¹⁹⁾。これらは臨床症状、CT scan や多く

は脳血管撮影で診断されてきた¹¹⁾。

しかし、近年は解離性動脈瘤に対する関心も高まり、画像診断の精度の向上もあいまって診断率も向上してきている^{2) 6) 7)}。特に、MRIの精度ならびに撮像法の発達に伴いMRI上解離を示唆する直接および間接所見を認めることがある^{7) 10)}。これらは、撮影時期が適当であれば証明され脳血管撮影の補助として役立つようである^{4) 15)}。解離性動脈瘤の血管撮影上の所見は、完全な閉塞から narrow tapered lumen (“string sign”) および狭窄まで多彩な所見を示す^{13) 18) 19)}。double lumen の証明が pathognomonic であるが、これらが認められるのはまれである^{17) 19)}。我々の症例もMRI上は解離性動脈瘤を強く示唆する所見は得られず、slow flow の所見は示すものの全体としては dolichoectatic basilar artery の所見を示すのみであった。症状の進行とともに頻回のMRI検査を行えば解離性動脈瘤の所見を得られたのかも知れない^{7) 10)}。

組織学的には、Yonas らは解離する Layer によって椎骨脳底動脈の解離性動脈瘤を2種類に分類している。一つは internal elastic lamina と media の間が解離するもので、他の一つは media と adventitia との間が解離するものである。頻度としては前者がはるかに多く、この場合虚血で発症することが多く、一方後者の方は少なく、破裂するものが多い^{5) 19)}。本症例では画像所見上 dolichoectatic basilar artery の所見を呈し、組織学的には intima と media の間で解離がみられ、臨床的には穿通枝領域の閉塞による虚血を生じたものと考えられ、Yonas らの分類では、前者に相当するものと思われる⁵⁾。

Mizutani らは dissecting aneurysm で拡張、屈曲および蛇行を示すいわゆる “dolichoectasia” と言われている血管撮影所見を2種類に分類している。Type 1 は false lumen および true lumen 両方が造影され double lumen として認めるもので、Type 2 は false lumen に血腫を形成し結果として true lumen の狭窄を示し “string sign” を認めるものである。また、これら典型的2 type に加え、これらの混合型も存在すると述べている¹⁰⁾。本例はこの分類からすると Type 2 に分類されるが、解離部では true lumen の狭窄を示さなかったのは、組織所見と対比してみると、false lumen の血腫の量が近位部より解離腔にかけて少なく遠位端で多く認められたためと考えられる。このため true lumen への狭窄は遠位端で起こり、拡張部の血流が低下し、MRI 所見の T₂WI で high intensity を示したものと考えられる^{1) 3) 10) 16)}。

解離の成因として、動脈硬化、中膜の変性、高血圧、壁の脆弱性、血行力学的要因など種々の原因が考えられている。本症例においては組織学的には内膜の消失、中膜筋層の内膜側の変性がより強いことはこの部位で血管壁の脆弱

が増し、hemodynamic stress も加わって解離の entry を招いたものと考ええる。

文 献

- 1) Anderson RM, Schechter MM: A case of spontaneous dissecting aneurysm of the internal carotid artery. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* **22**: 195-201, 1959
- 2) 安藤 隆, 坂井 昇, 山田 弘, ほか: 椎骨脳底動脈の紡錘状及び解離性動脈瘤—両者の比較検討—. *脳神経外科* **19**: 327-336, 1991
- 3) Axel L: Blood flow effects in magnetic resonance imaging [review]. *AJR* **143**: 1157-1166, 1984
- 4) Berger MS, Wilson CB: Intracranial dissecting aneurysm of posterior circulation. Report of six cases and review of the literature. *J Neurosurg* **61**: 882-894, 1984
- 5) Friedman AH, Drake CG: Subarachnoid hemorrhage from intracranial dissecting aneurysm. *J Neurosurg* **60**: 325-334, 1984
- 6) Ito Y, Ishii R, Suzuki Y, *et al*: Ruptured dissecting aneurysm in the vertebral artery revealed by repeat angiography. *Neurosurgery* **23**: 225-227, 1988
- 7) Iwama T, Andoh T, Sakaki N, *et al*: Dissecting and fusiform aneurysms of vertebrobasilar systems, MR imaging. *Neuroradiology* **33**: 272-279, 1990
- 8) Little JR, St Louis P, Weinstein M, *et al*: Giant fusiform aneurysm of the cerebral arteries. *Stroke* **12**: 183-188, 1981
- 9) Matsumoto K, Yamada K, Hayakawa T, *et al*: Dolichoectatic basilar artery treated by reducing hemodynamic stress—Report of two cases—. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **30**: 691-694, 1990
- 10) Mizutani T, Aruga T: “Dolichoectatic” intracranial vertebrobasilar dissecting aneurysm. *Neurosurgery* **31**: 765-773, 1992
- 11) Ojemann RG, Fisher CM, Rich JC: Spontaneous dissecting aneurysm of the internal carotid artery. *Stroke* **3**: 434-440, 1972
- 12) Sacks JG, Lindenberg R: Dolichoectatic intracranial arteries: Symptomatology and pathogenesis of arterial elongation and distention. *Johns Hopkins Med J* **125**: 95-106, 1969
- 13) Shimoji T, Bando K, Nakajima K, *et al*: Dissecting aneurysm of the vertebral artery. Report of seven cases and angiographic findings. *J Neurosurg* **61**: 1038-1046, 1984
- 14) Stehbens WE: The pathology of intracranial arterial aneurysms and their complications. *In*: Fox JL (ed), *Intracranial Aneurysms*, Springer-Verlag, New York, Berlin, Heidelberg, Tokyo, 1983, vol. 1: pp 272-357
- 15) 高橋立夫, 服部和良, 小林由充子, ほか: 椎骨脳底動脈解離の6例. *脳卒中の外科* **21**: 113-117, 1993
- 16) Wehrli FW, Simakawa A, MacFall JR, *et al*: MR imaging of venous and arterial flow by a selective saturation recovery spin echo (SSRSE) method. *J Comput Assist Tomogr* **9**: 537-545, 1985
- 17) 山浦 晶, 椎骨脳底動脈瘤の手術—Pitfalls and complications—. *Neurosurgeons* **4**: 375-383, 1984
- 18) Yamaura A: Diagnosis and treatment of vertebral aneurysms. *J Neurosurg* **69**: 345-349, 1988
- 19) Yamaura A, Watanabe Y, Saeki N: Dissecting aneurysms of the intracranial vertebral artery. *J Neurosurg* **72**: 183-188, 1990