症 例

片側もやもや病に合併した破裂脳底動脈瘤の1手術治験例

川崎 史朗, 山本 祐司, 角南 典生, 須賀 正和

A Surgical Case of a Ruptured Basilar Tip Aneurysm Associated with Unilateral Moyamoya Disease

Shiro KAWASAKI, M.D., Yuji YAMAMOTO, M.D., Norio SUNAMI, M.D., and Masakazu SUGA, M.D.

Department of Neurosurgery, Matsuyama Shimin Hospital, Matsuyama, Japan

Summary: We report a surgical case of a ruptured basilar tip aneurysm associated with unilateral moyamoya disease in an acute stage. A 73-year-old man, suffering from a severe headache and vomiting, was transferred to our hospital with a level of consciousness of Grade 2 of Hunt & Kosnik. CT demonstrated high-density areas in bilateral ventricles and subarachnoid space. Angiography revealed a basilar tip aneurysm associated with right unilateral moyamoya disease. No remarkable decrease of CBF was demonstrated on preoperative SPECT. On Day 2, neck clipping of the aneurysm was successfully performed with left pterional approach from the opposite side to moyamoya vessels. On Day 21, hemispheric CBF was preserved at 36.1 ml/100 g/min on the right and at 36.9 ml/100 g/min on the left, and Diamox response did not decrease very much. We discuss stages and approaches of surgical treatment for a basilar aneurysm associated with moyamoya disease by means of CBF measurement using SPECT with a review of the literature.

Key words:

- basilar tip aneurysm
- Moyamoya disease
- cerebral blood flow
- pterional approach
- SPECT

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 27: 220-224, 1999

はじめに

もやもや病に脳動脈瘤が合併する頻度は5-10%²⁾といわれ、その血行力学動態から椎骨・脳底動脈系に発生する比率が高く、主幹動脈瘤中42.4%という報告²⁰⁾がある。しかしもやもや病患者に動脈瘤を認め、手術治療を考慮する場合、その脳循環動態や動脈瘤への到達方法などが問題となる。最近、われわれは片側もやもや病に合併した高齢者の破裂脳底動脈瘤に対し、対側より approach する急性期 neck clipping を施行、併せて脳血流量の評価を行いながら良好な結果を得ることができたので報告する。

症 例

患 者: 73 歳. 男性.

主 訴: 突然の頭痛, 嘔吐.

既往歴: 甲状腺機能低下症, 難聴.

現病歴: 生来健康であった。1996 年 10 月 17 日, 突然の激しい頭痛と嘔吐にて発症し, 某院を受診した。CT にて左右側脳室から第四脳室に及ぶ脳室内出血とくも膜下出血(以下 SAH)を認め(Fig. 1), 当院に搬送された。

入院時所見: 意識ほぼ清明で, Japan Coma Scale 1. Hunt & Kosnik Grade 2(以下 Gr2)で麻痺などは認めなかった。

Fig. 1 CT scan on admission shows subarachnoid and intraventricular hemorrhage.

Fig. 2 Preoperative angiography: Left vertebral angiography discloses an aneurysm at the basilar bifurcation.

Right carotid angiography shows the occlusion at the terminal portion of right internal carotid artery and moyamoya vessels around the cerebral base.

Left carotid angiography shows the occlusion of left anterior cerebral artery.

神経放射線学的検査：10月18日、脳血管撮影を施行した (Fig. 2)。左椎骨動脈撮影で脳底動脈先端部に長径7 mm、横径6 mm、前後径6 mmの動脈瘤を一つ認めた。右内頸動脈終末部の閉塞とその末梢にもやもや血管を認め、他に左前大脳動脈A1末梢部にも閉塞を認めた。上記よりもやもや病不全型、すなわち、片側もやもや病に合併した破裂脳底動脈先端部動脈瘤と診断した。術前に^{99m}Tc-HMPAOを用いたSPECT定性を施行した (Fig. 3)。

椎骨・脳底動脈 (VB) 領域の脳血流増加はあるものの内頸動脈 (IC) 領域に著明な低下は認めず、術前 Gr2であったので左側からの approach が可能と考え、急性期に脳動脈瘤 neck clipping を行うことにした。

手術：発症2日目、左前頭側頭開頭を行い、pterional approach で進入した。左内頸動脈先端部および A1 と M1 起始部をみるに明らかな血管狭窄なく、もやもや血管も認めなかった。後交通動脈に沿い末梢側に進むと動脈瘤の

Fig. 3 Preoperative SPECT (qualitative image) shows no remarkable decrease of CBF in the territory of internal carotid artery.

domeを認めた．neckは低位のため後床突起を一部air drillで削除し同定した．杉田large clipを2本使用し，左右P1部より出る穿通枝をspareして，良好なneck clippingを行えた．橋前槽にカテーテルを留置し，術後，脳槽ドレナージとした．

経過および脳血流SPECT定量：術後は特に意識レベルの低下なく，遅発性脳血管攣縮への対策として濃厚赤血球輸血，昇圧療法，アルブミン製剤の点滴を行った．脳血管攣縮の程度を把握するために，発症7日目と21日目にSPECT定量を施行した．方法は ^{123}I -IMPを用いたmodified early法³⁾で，得られたSPECT画像上のCBF 10カ所のうち今回小脳1カ所および後頭葉2カ所をVB系に，また残り7カ所をIC系とに分け，IC系はさらに左右のh (hemispheric) CBFに分け，平均値を出した．安静時 (rest) およびDx (Diamox) 負荷，さらにDx反応率 $[(\text{Dx負荷CBF値} - \text{rest値}) / \text{rest値} \times 100(\%)]$ も併せて表示した．結果をFig. 4に示す．IC系hCBF定量値はrestで36.1 (単位：ml/100 g/min) から40.3の間にあり明らかな左右差は認めがたかった．VB系はIC系より血流は多く，Dx負荷でもよく増加した．IC系のDx負荷hCBF定量値は45.3から52.8の間にあり軽度増加したが，反応率で表すと右もやや側でやや低下していた．

実際の経過では発症11日目に基底核小梗塞による右不全片麻痺が出現し，血管攣縮の影響が考えられた．19日目の脳血管撮影では局所的な血管攣縮所見を認めたが動脈瘤は完全にclippingが行われており (Fig. 5)，もやもや血管を含め，その他の頭蓋内外血管に新たな異常を認めなかった．1997年3月5日，腰椎腹腔髄液短絡術施行，その後，徐々に回復し4月26日に独歩退院した．

考 察

自験例を含めてわれわれが渉猟しえたもやもや病に合併した脳底動脈瘤21例 (25例)^{1) 2) 4-11) 13-18) 20)}について考察してみる．すべて成人例 (30-73歳， 43.9 ± 10.9 歳) で男性9

例，女性12例，破裂10個，未破裂15個，部位は先端部12個，上小脳動脈分岐部13個であった．未破裂瘤も血流増加のstressを考慮し治療対象¹¹⁾と考えられている．手術方法はclipping 16例，wrapping 5例，血管内3例，到達不可能1例であった．

到達法はpterional approach (以下PT) が9例，subtemporal approach (以下ST) が7例に行われていた．成績はPTにて死亡例が2例^{4) 14)}あるものの，いずれも術前Gr5と悪い症例であった．またPTにてもやや血管が妨げになり動脈瘤に到達できなかった1例¹⁶⁾があり，PTよりもSTが有効であったとする報告^{5) 9) 18)}やorbitozygomatic approachが脳への圧排が最小限であったとする報告⁷⁾がある．動脈瘤の高さ，もやもや血管の部位・程度，外頸動脈からのanastomosisの温存などを考慮し，もやもや血管と脳への損傷や虚血をできるだけ避けるように個々の症例に適した到達法を選択している^{5) 9)}．また最近，未破裂脳底動脈瘤3例に対してGDC¹³⁾を，末梢動脈瘤に対してplatinum coil¹⁹⁾を用いた血管内手術の報告がみられ，開頭neck clippingの手術侵襲を考えると破裂脳底動脈瘤症例に対しても今後は血管内手術が推奨される可能性もあると思われた．

破裂例待機手術の報告は7例 (Gr1：2例，Gr2：2例，Gr4：1例，Gr5：1例，脳内血腫型破裂瘤：1例) で術前Gr5の1例が不幸な転帰をとっている以外はgood recoveryであった．破裂例急性期手術の報告^{15) 17)}は3例あり，いずれも術前Gr2で全例neck clippingできており，good recoveryであった．早期再破裂の危険性を考慮し術前Grがよければ急性期手術も十分適応¹⁸⁾と考えられ，自験例ではこの方針で行った．しかしもやもや病の場合，局所脳血流低下を認め，待機手術とした報告例¹¹⁾もあり，術前にSPECTなどで個々の症例での脳循環動態を把握することが重要である．

当院では脳血流SPECT定量にて脳血流量および循環予備能を評価している．当院での70歳台 (平均71.8歳) の正

Fig. 4 ^{123}I -HMP SPECT (quantitative images, resting state and post-administration of Diamox) was performed on Day 7 (*left*) and 21 (*right*). The numbers show individual CBF values (ml/100 g/min).
 VB: The territory of vertebro-basilar artery.
 IC: The territory of internal carotid artery.

Fig. 5 Postoperative angiography: Left vertebral angiography shows complete clipping of the aneurysm by using two clips.

常 hCBF 定量値は rest で 49.0 ± 6.6 , Dx 負荷で 77.6 ± 16.4 , 反応率 57.4% である²¹⁾。一方, もやもや病の脳循環の特徴は安静時の脳血流量は保たれているものの循環予備能の低下があることがこれまで指摘されている¹²⁾。実際, われわれが最近経験した基底核小出血で発症した 60 歳の典型的な両側もやもや病の hCBF 定量値は rest で右 38.5, 左 35.2 と保たれているものの, Dx 反応率は 10.9%, 17.9% と特に低下していた。片側もやもや病である自験例のもやもや側の hCBF 定量値は rest で 36.1–40.3, Dx 反応率は 25.5–29.0% とやや低下しているものの典型的な両側もやもや病よりも循環予備能は保たれていたと考えられた。このことは自験例が 73 歳という高齢になるまで脳循環不全症状などの既往なく, 生来健康であったことや今回 SAH を発症しても脳血管攣縮に耐えられて好結果が得られたことの裏づけと考えられた。

また片側もやもや病に合併した脳底動脈瘤に関しての手術報告は自験例を含めて 3 例のみでいずれも PT で行われており, Nagamine ら¹⁶⁾ はもやもや血管側から approach し到達できなかったとし, 花北ら⁴⁾ は反対側から approach し, clipping できたものの術前 Gr5 で不幸な転帰をとっていた。

自験例は報告例中, 最高齢であるが, 急性期にもやもや血管の反対側より PT にて到達, neck clipping が施行でき, 良好な結果を得ることできた。その際, 術前・術後の SPECT による脳血流測定が手術適応決定の判断や経過・予後の予測に有用であった。

文 献

- 1) Adams HP Jr, Kassell NF, Wisoff HS, *et al*: Intracranial saccular aneurysm and moyamoya disease. *Stroke* **10**: 174–179, 1979
- 2) 安藤 隆, 郭 泰彦, 岩井知彦, ほか: モヤモヤ病に合併した脳動脈瘤—自験 8 例の検討—. *The Mt Fuji Workshop on CVD* **12**: 196–201, 1994
- 3) 井上 武, 藤岡弘良, 赤宗明久, ほか: 単検出器回転型ガンマカメラと ¹²³I-IMP を用いた局所脳血流定量法の時間短縮と分割投与 Diamox 負荷への応用. *核医学* **32**: 1217–1226, 1995
- 4) 花北順哉, 三宅英則, 長安慎二, ほか: モヤモヤ血管を伴った動脈瘤, arterial ectasia 3 症例の治療経験. *脳卒中の外科* **16**: 175–179, 1988
- 5) 石倉 彰, 池田正人, 田口博基, ほか: モヤモヤ病を合併した後大脳動脈瘤, 脳底上小脳動脈瘤の 1 例. *医療* **50**: 510–514, 1996
- 6) 岩間 亨, 橋本信夫, 小林 映, ほか: モヤモヤ病に合併した脳動脈瘤に対する外科治療. *The Mt Fuji Workshop on CVD* **12**: 191–195, 1994
- 7) 鎌田喜太郎, 今西正巳, 川口正一郎: モヤモヤ病に合併した BA-SCA 動脈瘤に対する orbitozygomatic temporopolar approach の有用性. *脳卒中の外科* **21**: 161–166, 1993
- 8) 川口 務, 横山博明, 堤 圭介, ほか: もやもや病に合併した脳底上小脳動脈瘤, 後大脳動脈瘤の 1 手術例. *脳神経外科* **23**: 807–811, 1995
- 9) 河野兼久, 安部智宏, 岩田真治, ほか: モヤモヤ病に合併した破裂脳底動脈瘤 3 症例の治療経験—治療方法の選択についての文献的考察—. *脳卒中の外科* **24**: 357–364, 1996
- 10) 児玉南海雄, 峯浦一喜, 鈴木二郎: 脳血管 Moyamoya 病に合併した脳底動脈動脈瘤について. *脳神経外科* **5**: 65–69, 1977
- 11) 河野輝昭, 福嶋政昭, 森 和夫: モヤモヤ病にみられた脳底動脈動脈瘤の 1 手術例. *脳卒中の外科* **15**: 285–289, 1987
- 12) 桑原康雄, 一矢有一, 佐々木雅之, ほか: MRI で梗塞や出血を認めないモヤモヤ病患者の脳循環代謝. *核医学* **32**: 1355–1362, 1995
- 13) Massoud TF, Guglielmi G, Vinuela F: Saccular aneurysms in moyamoya disease: Endovascular treatment using electrically detachable coils. *Surg Neurol* **41**: 462–467, 1994
- 14) 宮城 潤, 重森 稔, 菊池泰輔, ほか: 破裂脳底動脈瘤を合併したモヤモヤ病の 1 例. *The Mt Fuji Workshop on CVD* **12**: 211–215, 1994
- 15) Muizelaar JP: Early operation of ruptured basilar aneurysm associated with bilateral carotid occlusion (moy-amoya disease). *Clin Neurol Neurosurg* **90**: 349–355, 1988
- 16) Nagamine Y, Takahashi S, Sonobe M: Multiple intracranial aneurysms associated with moyamoya disease. *J Neurosurg* **54**: 673–676, 1981
- 17) 佐古田利文, 笠井直人, 久保 毅, ほか: 破裂脳底動脈瘤を合併した成人モヤモヤ病の 1 手術例. 第 22 回日本脳卒中の外科研究会抄録集: 223, 1993
- 18) 佐藤光夫, 前田隆史, 後藤 健, ほか: モヤモヤ病に合併した破裂脳主幹動脈の治療. *The Mt Fuji Workshop on CVD* **12**: 202–207, 1994
- 19) 杉浦康仁, 松澤裕次: モヤモヤ血管に合併した末梢動脈瘤に対し platinum coil を用いて血管内治療を行った 1 例. *脳神経外科* **26**: 73–77, 1998
- 20) Yabumoto M, Funahashi K, Fujii T, *et al*: Moyamoya disease associated with intracranial aneurysms. *Surg Neurol* **20**: 20–24, 1983
- 21) 山本祐司, 角南典生, 須賀正和, ほか: 無症候性未破裂脳動脈瘤症例における脳循環予備能の評価—年齢別による検討—. 第 21 回日本脳神経 CI 学会総会抄録集: 1998