

外転神経麻痺で発症した primitive trigeminal artery variant (PTAv) aneurysm に対するコイル塞栓術の一例：症例報告

松本順太郎¹⁾ 竹本光一郎¹⁾ 東登志夫¹⁾ 岩朝光利¹⁾ 大川将和¹⁾
保田宗紀¹⁾ 安部 洋¹⁾ 井上 亨¹⁾ 中原一郎²⁾

A case of coil embolization for the primitive trigeminal artery variant (PTAv) aneurysm presented with abducens nerve palsy: case report

Juntaro MATSUMOTO¹⁾ Koichiro TAKEMOTO¹⁾ Toshio HIGASHI¹⁾ Mitsutoshi IWAASA¹⁾ Masakazu OKAWA¹⁾
Munenori YASUDA¹⁾ Hiroshi ABE¹⁾ Tooru INOUE¹⁾ Ichiro NAKAHARA²⁾

1) Department of Neurosurgery, Fukuoka University School of Medicine

2) Department of Neurosurgery, Kokura Memorial Hospital

●Abstract●

Objective: We herein report a rare case of primitive trigeminal artery variant (PTAv) aneurysm presenting with abducens nerve palsy.

Case presentation: A 61-year-old female had suffered from diplopia of her left lateral gaze for seven days due to left abducens nerve palsy. Left carotid angiography showed a PTAv trunk aneurysm. Internal trapping of the aneurysm with detachable coils was performed. The left abducens nerve palsy thereafter showed a remarkable improvement and disappeared completely.

Conclusion: Only six previously reported cases of PTAv were associated with an aneurysm of the PTAv. Two of the six cases presented with abducens nerve palsy. We therefore consider coil embolization of PTAv aneurysms to be a useful treatment, even if the patient presents with abducens nerve palsy.

●Key Words●

abducens nerve palsy, coil embolization, primitive trigeminal artery variant aneurysm

1) 福岡大学医学部 脳神経外科

2) 社会保険小倉記念病院 脳神経外科

<連絡先：竹本光一郎 〒814-0180 福岡市城南区七隈7-45-1 E-mail：take9016@gmail.com>

(Received March 16, 2011 : Accepted May 9, 2011) 2011)

緒言

Primitive trigeminal artery (PTA) は内頸動脈の C4/5 部と上小脳動脈と前下小脳動脈の間の脳底動脈を結ぶ最も高頻度に認められる遺残動脈であり脳動脈瘤、脳動静脈奇形、三叉神経痛などとの合併の報告がある⁶⁾。PTA variant (PTAv) は PTA が直接、小脳皮質静脈と交通するものであるが、PTA 同様に動脈瘤の合併が報告されている。今回われわれは PTAv aneurysm により外転神経麻痺を来した稀な症例を経験したので、解剖学

的特徴を中心に文献的考察を加え報告する。

症例呈示

患者：61 歳，女性。

主訴：複視。

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

現病歴：2008 年 10 月 1 日，左方注視時の複視が出現し，その後も症状の改善がなく 10 月 7 日に当院眼科を受診した。左外転神経麻痺を指摘され，神経疾患疑いにて頭



Fig. 1
MR angiography source images demonstrated a laterality of the signal intensity at the bilateral cavernous sinus. Little enlargement of left cavernous sinus was shown.

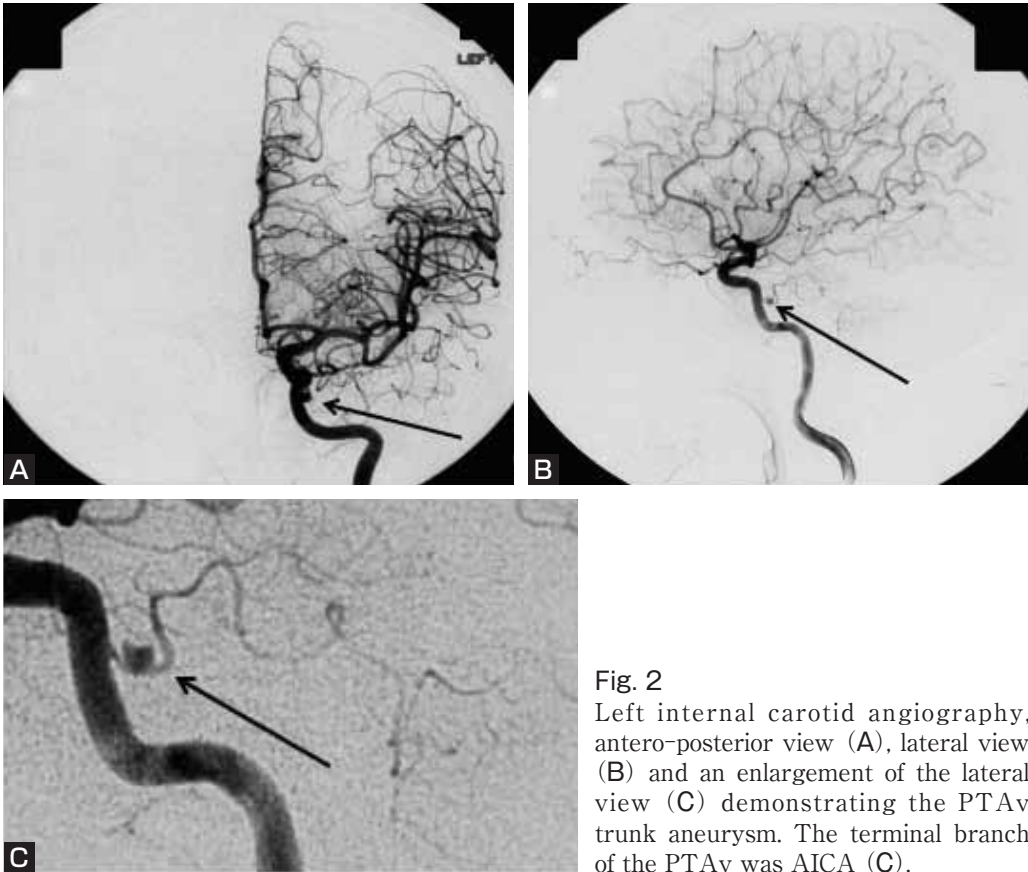


Fig. 2
Left internal carotid angiography, antero-posterior view (A), lateral view (B) and an enlargement of the lateral view (C) demonstrating the PTA trunk aneurysm. The terminal branch of the PTA was AICA (C).

部 MRI を施行された。造影後 TOF にて海綿静脈洞部に信号の左右差があり，左海綿静脈洞部硬膜動静脈瘻を疑われ，当科紹介受診となった (Fig. 1).

入院時神経学的所見：意識清明，左眼はほぼ完全な外転制限があり，他の方向では運動制限を認めない。眼球突出や眼球結膜の充血はない。

脳血管撮影所見：外頸動脈撮影では明らかな AVF の所見は認められず，左内頸動脈撮影にて，錐体部から海綿静脈洞部の移行部背外側に瘤状の拡張と皮質静脈動脈と思われる血管を認めた。AICA 領域に灌流していることから PTA と診断した (Fig. 2).

治療方針：脳血管撮影と MRI の所見より PTA に発生



Fig. 3

Left internal carotid angiography (A, B) and left vertebral angiography (C) after treatment. The aneurysm and distal branch of the PTA were not filled on the left internal carotid angiography (A, B). The left vertebral angiography demonstrated a hypoplastic AICA origin supplying the distal branch of the PTA (C).

した動脈瘤が海綿静脈洞内にあり，同部にて外転神経を圧迫していることから麻痺症状を来したものと推察した。症状が急激に進行し，ほぼ完全麻痺となっていることから自然軽快が期待できず，症状改善を考慮すると可及的早期の治療が必要と判断した。治療は拍動による圧迫症状の軽減を期待して，血管内治療での瘤内塞栓を考慮したが wide neck 瘤で母血管も非常に細いため，母血管温存は困難であり internal trapping の方針とした。破裂を来してもくも膜下出血を来す可能性は少ないが頸動脈海綿静脈洞瘻の可能性があること，治療により AICA 領域の脳梗塞を来す可能性があること，治療後も眼球運動障害が残存する可能性があることを説明した上で同意を得て治療に臨んだ。

血管内治療：全身麻酔下に internal trapping を行った。右大腿動脈穿刺にて 6Fr Slim guide (Medikit, Tokyo) を左内頸動脈へ誘導した。まずは Echelon 10 preshaped 90° (Micro therapeutics, Natick, MA, USA) と 0.010-inch Transcend softtip (Boston scientific, Natick, MA, USA) にて PTA への誘導を試みたが，内頸動脈からの分岐角度が急峻であり，マイクロワイヤーは PTA 内にカニューレーションできるが，マイクロカテーテルを追従させると，遠位側の内頸動脈に逸脱してしまい，シンプルテクニックでの誘導は困難であった。このため遠位側の内頸動脈で HyperForm 7 mm × 7 mm (eV3 Neurovascular, Irvine, CA, USA) のバルーンを拡張し，逸脱を防止しま

イクロカテーテルを追従させた。動脈瘤の遠位側に ED coil 10 extrasoft 2 mm × 4 cm (Kaneka medics, Kanagawa) を 1 本留置し，続いて瘤内を ED coil 10 extrasoft 1.5 mm × 2 cm 2 本，1.5 mm × 1 cm 2 本で塞栓した。この間，マイクロカテーテルの逸脱を防ぐためバルーンを拡張してサポートした。左内頸動脈撮影にて動脈瘤および PTA が描出されないのを確認し手術を終了した。また術後の左椎骨動脈撮影では脳底動脈より分岐する低形成の左前下小脳動脈が認められ，遠位側まで描出されていた。脳梗塞合併はなく，術後 2 ヶ月で左外転神経麻痺はほぼ完全に消失した (Fig. 3)。

考 察

PTA は血管撮影上 0.1~0.3% と最も高頻度に認められる primitive carotid-basilar anastomosis であり^{17,27)}，そのうち約 25% に脳動脈瘤や脳動静脈奇形などの頭蓋内血管病変を合併するとされている⁶⁾。PTAv は本来脳底動脈と吻合する PTA が小脳動脈に直接吻合するもので，PTA と longitudinal neural artery の不十分な融合が合併したため起こると考えられている¹⁵⁾。PTAv の頻度も PTA と同じく 0.1~0.3% と報告されている²⁷⁻²⁹⁾。PTAv の小脳支配領域は SCA, AICA, PICA のいずれの領域でもよいが，現在まで自験例を含め 71 例の報告があり^{1-5,7-14,16,18-20,22-26,30-40)}，AICA への吻合が最も多く，71.6% と報告されている²³⁾。解剖学的には PTA より近

Table 1 Summary of reported cases of primitive trigeminal artery variant aneurysm

Author	Age/Sex	Location	Termination of PTA _v	Symptom	Treatment
Matsuda (1979)	32y-o female	ICA-PTA _v junction	SCA	SAH	n.d.
Watanabe (1988)	67y-o female	ICA-PTA _v junction	AICA	SAH	n.d.
Hanabusa (2000)	71y-o female	PTA _v trunk	AICA	SAH	ITA
Nishio (2001)	69y-o female	ICA-PTA _v junction	PICA	CN VI palsy	IAE
Yang (2009)	48y-o male	PTA _v trunk	AICA	SAH	ITA
present case	61y-o female	PTA _v trunk	PICA	CN VI palsy	ITA

AICA : anterior inferior cerebellar artery, IAE : intra-aneurysmal embolization, ITA : internal trapping of aneurysm, n.d. : no description, PICA : posterior inferior cerebellar artery, PTA_v : primitive trigeminal artery variant, SCA : superior cerebellar artery.

位側内頸動脈 (precavernous portion) から起始するとされており⁷⁾, 外転神経の内側から上行して三叉神経内側で硬膜内に入る³⁾. 脳槽内ではPTAよりも外側を走行し小脳動脈と吻合する. PTAは三叉神経痛の責任血管になり得るとされているが, PTA_vの方が解剖学的走行から三叉神経痛を起しやすく, Moritaらは1257例の三叉神経痛に対するmicrovascular decompressionの経験で1例がPTAで, 7例はPTA_vが責任血管であったと報告している²¹⁾. またPTA_vはPTAと同様に脳動脈瘤を高頻度に合併するとされ約26%と報告されている³⁸⁾. しかしながら, そのほとんどはWillis動脈輪に認められ, PTA_vに発生した動脈瘤は比較的稀とされている. 現在まで自験例を含め, 報告は71例中6例のみ(8.5%)であり(Table 1), 発生部位はICA-PTA_v junctionが3例とPTA_v本幹部動脈瘤が3例であった^{7,19,23,38,40)}. 発症形式は外転神経麻痺が6例中2例であり, 残り4例はくも膜下出血で発症している. 解剖学的にPTA_vはPTAよりも近位側内頸動脈から分岐し, 外転神経のすぐ内側を走行することから外転神経を圧迫しやすくなるためと思われる. 治療としては3例に血管内治療が行われており, 1例が瘤内塞栓²³⁾, 3例がinternal trappingであった^{7,40)}. 全例, 脳梗塞の合併は認めていない. PTA_v症例の一部では画像上, 小脳の皮質動脈と脳底動脈の間に交通が認められると報告されており^{10,34)}, ArakawaらはPTA_vとBAに小血管による吻合を認めた剖検例を報告している³⁾. 自験例でも, 治療前にPTA_vから灌流されていたAICA遠位部が, 血管内治療後の椎骨動脈撮影にて低形成のAICA起始部より描出された. この点については術前に内頸動脈でballoon occlusion testを行い,

閉塞時の椎骨動脈撮影をすることで予め確認が可能なので予め施行するべきであった. 外転神経麻痺例は自験例を含め2例であるが, いずれも血管内治療が施行され, 外転神経麻痺は改善傾向を認めており, 治療法として有用と思われる.

結 語

外転神経麻痺で発症したPTA_v aneurysmに対しコイル塞栓術を行った. PTA_v関連動脈瘤の報告は現在まで自験例を含め6例と稀であり, このうち2例に外転神経麻痺を認めた. 2例とも血管内治療にて外転神経麻痺の改善を認めており, 有効な治療法と思われる.

文 献

- 1) Abe T, Matsumoto K, Aruga T: Primitive trigeminal artery variant associated with intracranial ruptured aneurysm and cerebral arteriovenous malformation: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **34**:104-107, 1994.
- 2) Anderson RA, Sondheimer FK: Rare carotid-vertebrobasilar anastomoses with notes on the differentiation between proatlantal and hypoglossal arteries. *Neuroradiology* **11**:113-118, 1976.
- 3) Arakawa T, Koizumi M, Terashima T, et al: Two anatomical autopsy cases of direct communication between a persistent primitive trigeminal artery and an anterior inferior cerebellar artery. *Ann Anat* **189**:489-498, 2007.
- 4) Chambers AA, Lukin R: Trigeminal artery connection to the posterior inferior cerebellar arteries. *Neuroradiology* **9**:121-123, 1975.
- 5) Cobb SR, Hieshima GB, Mehringer CM, et al: Persistent trigeminal artery variant. Carotid-anterior inferior cerebellar artery anastomosis. *Surg Neurol* **19**:263-266, 1983.

- 6) George AE, Lin JP, Morantz RA: Intracranial aneurysm on a persistent primitive trigeminal artery: case report. *J Neurosurg* **35**:601-604, 1971.
- 7) Hanabusa K, Murao K, Morikawa A: Endovascular treatment for a ruptured persistent trigeminal artery variant aneurysm on the distal portion: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **40**:637-640, 2000.
- 8) Harwood-Nash DC: Normal angiography, in: *Neuroradiology in Infant and Children*. St Louis, Mosby, 1976, pp318-460.
- 9) Hisano S, Uemura K, Ogawa T, et al: Persistent trigeminal artery variant: a case report of 5 cases and some embryological consideration. *Rinsho Hoshasen* **32**: 263-268, 1987.
- 10) Houghton VM, Rosenbaum AE, Pearce J: Internal carotid artery origins of the inferior cerebellar arteries. *AJR Am J Roentgenol* **130**:1191-1192, 1978.
- 11) Hui MS, Choi WM, Liu HM, et al: Anomalous origin of the posterior inferior cerebellar artery from the pre-cavernous portion of the internal carotid artery: a primitive trigeminal artery variant. *Eur J Radiol* **19**:10-13, 1994.
- 12) Itoh J, Takeda N, Suzuki Y, et al: Anomalous origin of the anterior inferior cerebellar arteries from the internal carotid artery. *Neuroradiology* **19**:105-109, 1980.
- 13) Katsuragi M, Inoue Y, Ueda J, et al: An anomalous branch of the internal carotid artery supplying vessels of posterior fossa directly. *No To Shinkei* **32**:515-521, 1980.
- 14) Khodadad G: Persistent trigeminal artery in the fetus. *Radiology* **121**:653-656, 1976.
- 15) 小宮山雅樹：脳脊髄血管の機能解剖。大阪，メディカ出版，2007，56-57.
- 16) Lasjaunias P, Moret J, Manelfe C, et al: Arterial anomalies at the base of the skull. *Neuroradiology* **13**:267-272, 1977.
- 17) Lie TA: Congenital malformations of the carotid and vertebral arterial systems, including the persistent anastomoses. *Handbook of Clinical Neurology*. New York, American Elsevier, 1972, 289-339.
- 18) Manabe H, Oda N, Ishii M, et al: The posterior inferior cerebellar artery originating from the internal carotid artery, associated with multiple aneurysms. *Neuroradiology* **33**:513-515, 1991.
- 19) Matsuda I, Handa J, Handa H, et al: Carotid-superior cerebellar anastomosis: a variant of persistent trigeminal artery associated with cerebral aneurysms and angiomatous malformation: case report. *Nippon Geka Hokan* **48**:535-541, 1979.
- 20) Morimoto T, Sakaki J, Takemura K, et al: Anterior inferior cerebellar artery originating from internal carotid artery. *Rinsho Hoshasen* **31**:172-173, 1986.
- 21) Morita A, Fukushima T, Miyazaki S, et al: Tic douloureux caused by primitive trigeminal artery or its variant. *J Neurosurg* **70**:415-419, 1989.
- 22) Nakagawara J, Kikuchi H, Karasawa J, et al: Angiographic cerebro-vascular anomalies: incidence and clinical significance. *Neuroradiology* **24**:126, 1982.
- 23) Nishio A, Nishijima Y, Komiyama M: Primitive trigeminal artery variant aneurysm treated with Guglielmi detachable coils: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **41**:446-449, 2001.
- 24) Nutik S, Dilenge D: Carotid-anterior cerebral artery anastomosis. case report. *J Neurosurg* **44**:378-382, 1976.
- 25) Okada Y, Nakagawara J, Fujiwara H, et al: Six cases of persistent carotid-SCA (superior cerebellar artery) anastomosis. *Neuroradiology* **26**:86, 1984.
- 26) Okuno T, Nishiguchi T, Hayashi S, et al: A case of carotid superior cerebellar artery anastomosis associated with bilateral hypoplasia of the internal carotid artery represented as the rupture of posterior cerebral artery-posterior communicating artery aneurysm. *No Shinkei Geka* **16**:1211-1217, 1988.
- 27) O'uchi E, O'uchi T: Persistent primitive trigeminal arteries (PTA) and its variant (PTAV): analysis of 103 cases detected in 16,415 cases of MRA over 3 years. *Neuroradiology* **52**:1111-1119, 2010.
- 28) Raphaeli G, Bandeira A, Mine B, et al: A rare variant of persistent trigeminal artery: cavernous carotid-cerebellar artery anastomosis: a case report and a systemic review. *Cerebellum* **8**:445-447, 2009.
- 29) Rhee SJ, Kim MS, Lee CH, et al: Persistent trigeminal artery variant detected by conventional angiography and magnetic resonance angiography-incidence and clinical significance-. *J Korean Neurosurg Soc* **42**:446-449, 2007.
- 30) Scotti G: Anterior inferior cerebellar artery originating from the cavernous portion of the internal carotid artery. *Radiology* **116**:93-94, 1975.
- 31) Siqueira M, Piske R, Ono M, et al: Cerebellar arteries originating from the internal carotid artery. *AJNR* **14**:1229-1235, 1993.
- 32) Taguchi Y, Irikura T, Suzuki T, et al: Primitive trigeminal artery. *Rinsho Hoshasen* **24**:182-183, 1979.
- 33) Tanohata K, Naehara T, Machida T, et al: Persistent trigeminal artery variant type: a case report of 5 cases and review of the literature. *Rinsho Hoshasen* **30**:180-181, 1985.
- 34) Teal JS, Rumbaugh CL, Bergeron RT, et al: Persistent carotid-superior cerebellar artery anastomosis: a variant of persistent trigeminal artery. *Radiology* **103**:335-341, 1972.
- 35) Tomsick TA, Lukin RR, Chambers AA, et al: Persistent trigeminal artery: unusual associated abnormalities. *Neuroradiology* **17**:253-257, 1979.
- 36) Tomura M, Tamagawa Y, Katoh T, et al: Two cases of the anterior inferior cerebellar arteries arising from the internal carotid artery. *Rinsho Hoshasen* **30**:1583-1585, 1985.
- 37) Turkoglu E, Arat A, Patel N, et al: Anterior communicating artery aneurysm associated with an infraoptic course of anterior cerebral artery and rare variant of the persistent trigeminal artery: a case report and literature review. *Clin Neurol Neurosurg* **113**:335-340, 2011.
- 38) Watanabe T, Aoki A, Su CC: Two case of persistent trigeminal artery variant. *No Shinkei Geka* **16**:95-100, 1988.
- 39) Yamanome T, Kanaya H, Ogawa A: Persistent carotid-superior cerebellar artery anastomosis presenting with

cerebellar ischemic attack: a case of persistent trigeminal artery variant. *No To Shinkei* 47:1104-1107, 1995.

40) Yang Z, Liu J, Zhao W, et al: A fusiform aneurysm of a persistent trigeminal artery variant: case report and literature review. *Surg Radiol Anat* 32:401-403, 2009.

JNET 5:57-62, 2011

要 旨

【目的】外転神経麻痺で発症した primitive trigeminal artery variant (PTAv) aneurysm を経験したので報告する。**【症例】**7日前からの左外転神経麻痺を呈した61歳の女性。左内頸動脈撮影にてPTAv本幹部動脈瘤を認めた。これに対しinternal trappingを施行し、左外転神経麻痺は完全に消失した。**【結語】**PTAv関連動脈瘤の報告例は6例と稀であり2例に外転神経麻痺を認めた。2例とも血管内治療にて外転神経麻痺の改善を認めており有効な治療法と思われる。