

# Persistent primitive hypoglossal artery に関連した後下小脳動脈の破裂脳動脈瘤に対するコイル塞栓術の1例

太田剛史<sup>1)</sup> 林 英樹<sup>2)</sup> 高橋由紀<sup>2)</sup> 村尾健一<sup>1)</sup>

## Coil embolization of a ruptured aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery associated with persistent primitive hypoglossal artery

Tsuyoshi OHTA<sup>1)</sup> Hideki HAYASHI<sup>2)</sup> Yuki TAKAHASHI<sup>2)</sup> Kenichi MURAO<sup>1)</sup>

1) Department of Neuroendovascular Treatment, Shiroyama Hospital

2) Department of Neurosurgery, Kitano Hospital

### ●Abstract●

**Objective:** We present a case of ruptured aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery associated with persistent primitive hypoglossal artery.

**Case presentation:** A 42-year-old female presented with a subarachnoid hemorrhage. Coil embolization of the saccular portion of the aneurysm through a persistent primitive hypoglossal artery brought about a good clinical outcome.

**Conclusion:** It is reasonable to occlude only the saccular portion of the aneurysm to prevent rebleeding. Further studies are needed to confirm the phylogenetic background of the aneurysm.

### ●Key Words●

coil embolization, endovascular therapy, persistent primitive hypoglossal artery, posterior inferior cerebellar artery

1) 春秋会城山病院 脳血管内治療科

2) 田附興風会北野病院 脳神経外科

<連絡先: 太田剛史 〒583-0872 大阪府羽曳野市はびきの2-8-1 E-mail: tsuyoshi@ya2.so-net.ne.jp >

(Received September 28, 2011 : Accepted July 5, 2012)

## 緒言

遺残原始舌下動脈 (persistent primitive hypoglossal artery; PHA) は0.027-0.1%<sup>3)</sup>とまれな内頸動脈と椎骨・脳底動脈系の原始血管吻合である。PHAに関連した脳動脈瘤の報告は複数見られるが、部位はさまざま、治療としては開頭クリッピング術やコイル塞栓術が行われている。今回PHAに関連した後下小脳動脈 (posterior inferior cerebellar artery; PICA) の破裂脳動脈瘤に対するコイル塞栓術を経験した。同部位に対するコイル塞栓術は今までに報告がなく、治療の妥当性についての若干の文献考察を加えて報告する。

## 症例呈示

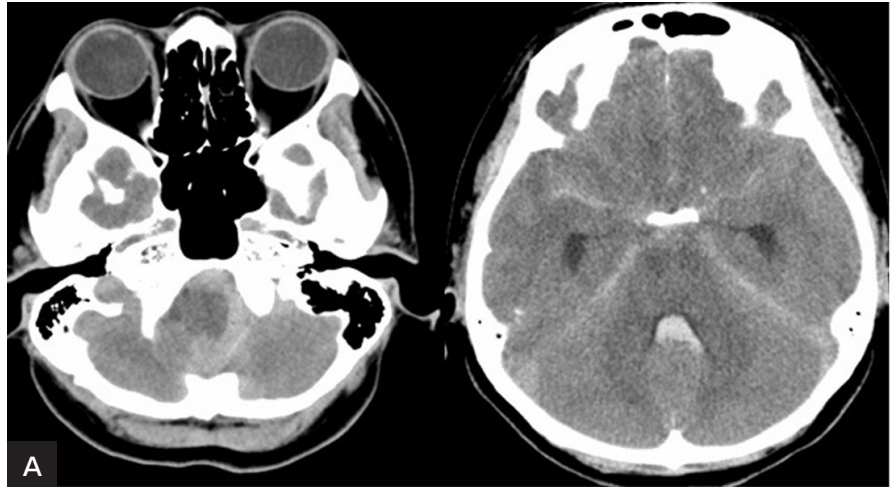
症例: 42歳, 女性.

主訴: 急激な頭痛, 意識障害

現病歴: 電車に乗っている最中に突然の頭痛と意識障害を呈し当院へ搬入された。

入院時神経学的所見: Japan Coma Scale 100, Glasgow Coma Scale E1V2M4<sup>15)</sup>の重度の意識障害を認めた (World Federation of Neurosurgical Surgeons scale IV<sup>5)</sup>). 局所神経学的異常は伴わなかった。

入院時画像所見: 緊急頭部CTで後頭蓋窩の脳幹周辺に厚いくも膜下出血を認めた (Fig. 1A, Fisher group 3). 脳血管撮影では左内頸動脈撮影で舌下神経管を通して後頭蓋窩に流入する動脈を認め、そこから両側の後下小脳



**Fig. 1** Preoperative and postoperative images

**A:** Head computed tomography (CT) reveals dense subarachnoid hemorrhage especially around the brain stem.

**B:** Preoperative left carotid angiogram (Left: anteroposterior view, Right: lateral view). Persistent primitive hypoglossal artery (PHA) arises from the left cervical internal carotid artery and the aneurysm is located adjacent to the foramen magnum.

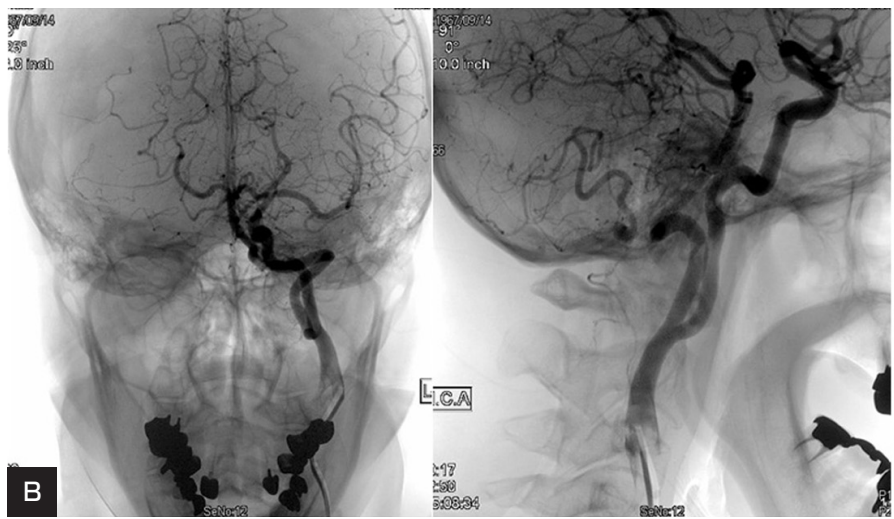
**C:** Preoperative vertebral angiogram (Left: right vertebral artery, anteroposterior view, Right: left vertebral artery, anteroposterior view). Both vertebral arteries (VAs) are hypoplastic.

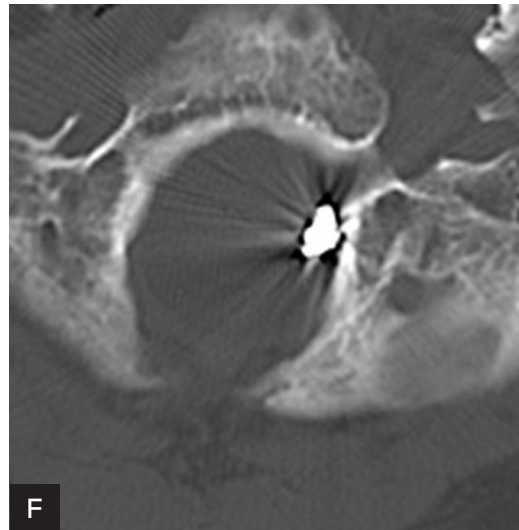
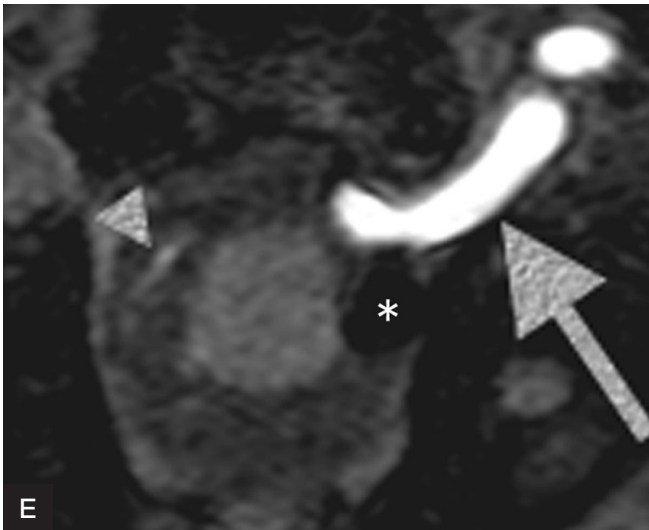
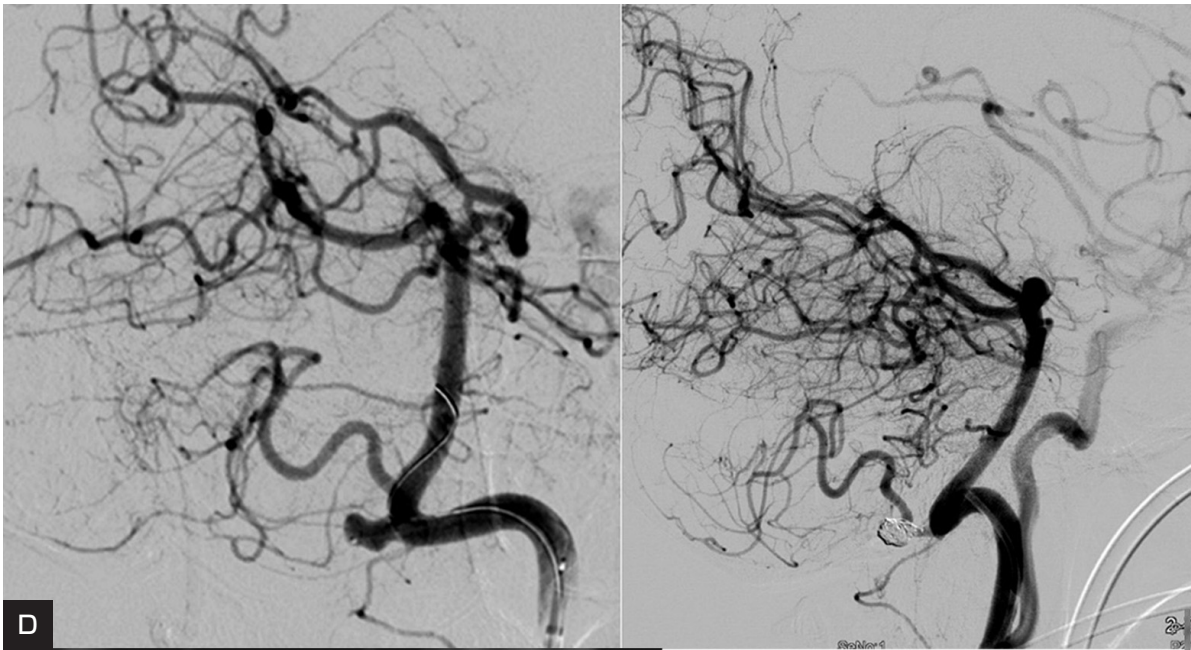
**D:** Oblique view of the left carotid angiogram (Left: preoperative, Right: postoperative). The aneurysm is completely occluded with preservation of the parent artery.

**E:** Postoperative magnetic resonance imaging depicts the large artery passing through the left hypoglossal canal (arrow), the right hypoplastic vertebral artery (VA; arrowhead), and the coil mass (asterisk).

**F:** Postoperative head CT reveals the dilated hypoglossal canal and the position of the coil.

**G:** Three-dimensional digital subtraction angiographic frontal and lateral views of the left carotid angiogram showing the vascular anatomy around the aneurysm more clearly.





動脈支配領域を栄養する動脈に脳動脈瘤を認めた (Fig. 1B, G). 両側椎骨動脈は低形成だった (Fig. 1C).

治療方針：可視化された分岐動脈をもたない脳動脈瘤であり若年ではあったが、重症のくも膜下出血で後頭蓋窩の破裂脳動脈瘤であったため、血管内治療で拡張部のみをコイル塞栓する方針を選択した。

コイル塞栓術：バイプレートのフラットパネルアンギオ装置にて全身麻酔下に行った。右大腿動脈に6 Fr long sheathを挿入し全身ヘパリン化後PHAに6 Fr Envoy 90 cm (Cordis Neuroendovascular, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA)を留置した。まずHyperForm 4×7 mm (Medtronic, Minneapolis, MN, USA)を動脈瘤の含まれる動脈の起始部に留置した。次いでExcelsior SL-10 STR (Stryker, Kalamazoo, MI, USA)をSilverSpeed 10 (Medtronic)にて脳動脈瘤内に誘導した。GDC 360 5 mm×15 cm (Stryker)でフレームを形成し、GDC10 soft 2D SR 2 mm×8 cmを2本、3 mm×6 cm, GDC 10 Ultrasoft 2 mm×3 cmを瘤内に挿入し、造影剤の流入が完全に消失したことを確認して手技を終了した (Fig. 1D, Volume embolization ratio : 27.4%)。

術後経過：翌日まで全身麻酔を継続、コイルが一部親動脈に突出しているように見えたためヘパリン化を継続したが、翌日の脳血管撮影では脳動脈瘤は閉塞しており、かつ、末梢動脈の描出は良好であったためヘパリン投与を終了し静脈麻酔薬の投与を中止した。抗血小板療法を開始し (アスピリン 100 mg/日, クロピドグレル 75 mg/日), スパイナルドレナージを10日間留置, 遅発性脳血管攣縮は出現せず術後14日目には意識障害は回復した (JCS 0)。後頭蓋窩の圧亢進によると思われる両側の外転神経麻痺を認めたが, 2ヵ月後には完全に消失した。術後1年目の評価では脳動脈瘤およびくも膜下出血の再発は認められず modified Rankin scale 0であった。

## 考 察

PHAは頸部頸動脈の起始部より生じ (Fig. 1B), 拡張した舌下神経管を通して後頭蓋窩に入る (Fig. 1E, F)<sup>4)</sup>。PHAに関連した脳動脈瘤は複数報告されており, 脳底動脈分岐部<sup>2,14)</sup>, PHA上<sup>1,6,13,16,17)</sup>, 脳底動脈とPHAとの接合部<sup>9)</sup>, 脳底動脈の下部<sup>7)</sup>, 脳底動脈窓形成部<sup>10)</sup>, そして本症例のようにPICA近位走行部<sup>8,11)</sup>に存在するものもある。

本症例では動脈瘤が何らかの分岐とは無関係に起始し

ているように見え解離性変化も否定できなかった。しかし, たとえ真性脳動脈瘤ではなかったとしても親動脈閉塞や開頭手術は困難なことが予想されたため拡張部のみ瘤内塞栓術を選択し, 結果的に良好な結果を得ることができた。

PHAは脳底動脈<sup>4)</sup>または対側の椎骨動脈<sup>12)</sup>と吻合する。本症例ではPHAは脳底動脈と左側 (同側)の低形成の椎骨動脈との接合部に合流していた (Fig. 1G)。本動脈瘤が存在する動脈はこれらの動脈の接合部より起始し, 延髄の左側を走行し最終的には両側小脳半球下面, すなわち一般的な症例でいうところの両側PICAの支配領域に到達していた (Fig. 1G)。本症例のようにPHAに合併したPICA自体の破裂脳動脈瘤は文献で渉猟した範囲では過去に2例報告<sup>8,11)</sup>されている。いずれの症例も椎骨動脈低形成を伴っており, 何らかの共通の発生学的基盤があるものと考えられた。

それらの過去の報告では動脈瘤の治療として開頭クリッピング術が行われており, 術前の脳血管撮影と術野の所見により, それぞれ, 「同側椎骨動脈の欠損, PHAから起始するPICAの近位走行部の脳動脈瘤<sup>8)</sup>」, 「両側椎骨動脈の脳血管撮影上の低形成, PHAから起始する同側PICAの近位側に脳動脈瘤が存在, 同部位には脳血管撮影上描出されない遺残性の近位椎骨動脈が合流<sup>11)</sup>」と判断していた。それらの解釈ではPHAと同側のPICAの近位走行部に脳動脈瘤が存在していることになり, 後者では脳動脈瘤の存在部位には椎骨動脈が合流しているということになる。本症例ではPHAと同側の近位VAはPHAとの接合部からの逆行性造影にて脳血管撮影上描出されていたため, 過去の報告と共通の構造, すなわち上述の椎骨動脈との接合部があると仮定できるだろう。そうすると, 反対側の椎骨動脈が両側小脳を支配する同側PICAに合流している部分に脳動脈瘤が発生したと考えられる (Fig. 2B, D gray arrow)。もう一つの解釈としては, 過去の報告で「近位PICA」とされていた動脈 (PHAより起始し脳動脈瘤が起こるまでの部位)を反対側の遠位椎骨動脈とする考えも可能かもしれない (Fig. 2C, D black arrowhead)。ただし本症例でも, 過去の報告と同様にPHAと反対側の近位VAを血管撮影上描出することはできなかった。術後のMR angiographyでは反対側の低形成の椎骨動脈が動脈瘤に近づいていることが示されたが (Fig. 1E), コイルのartifactのため合流点そのものは描出できなかった。ま

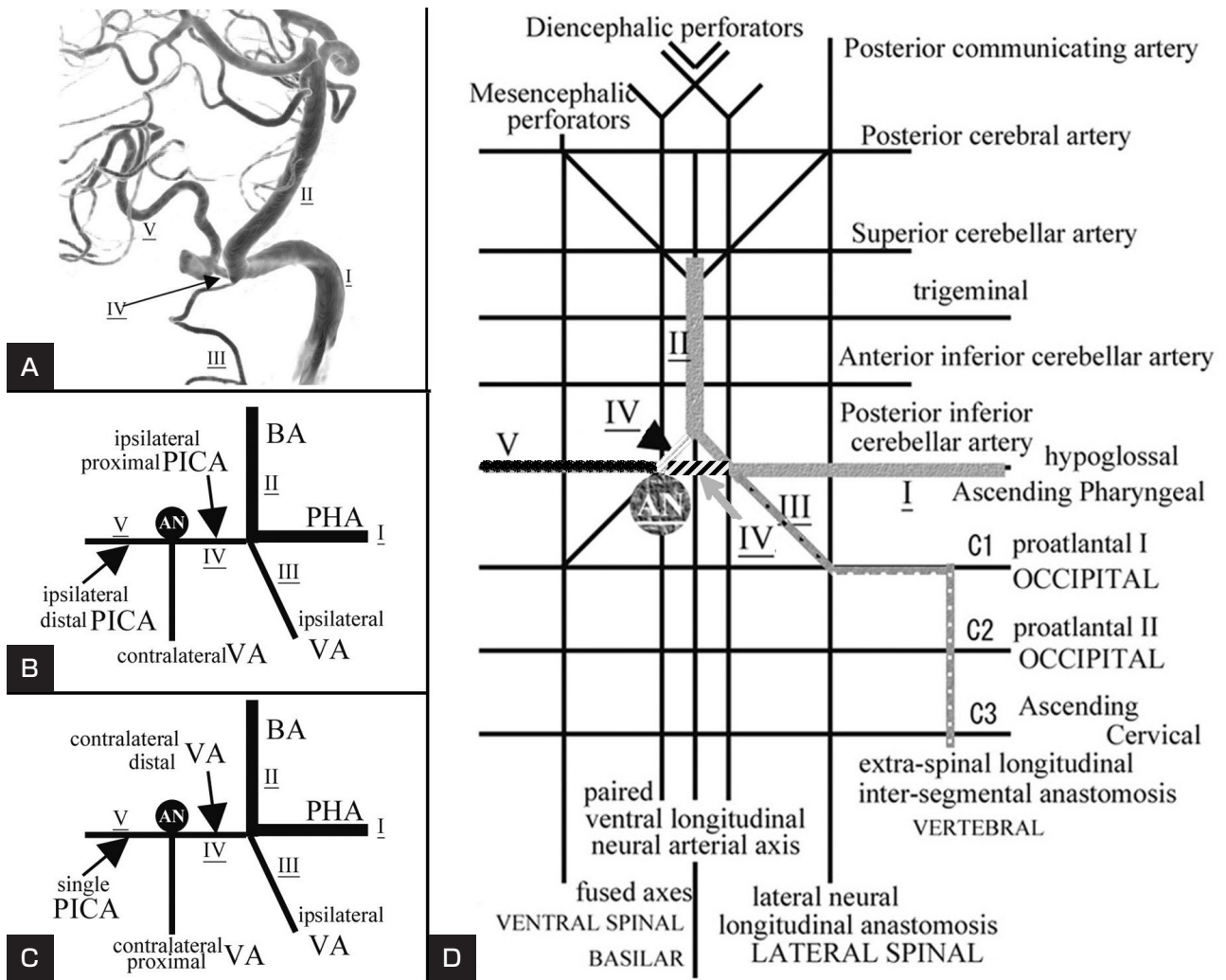


Fig. 2 Interpretations of the development of the aneurysm  
 A : Each artery in the oblique view is labeled with a Roman numeral.  
 B : Interpretation from the previous reports. The aneurysm is at the proximal course of the ipsilateral posterior inferior cerebellar artery (PICA).  
 C : The aneurysm is at the origin of the single PICA extending from the contralateral vertebral artery (VA).  
 D : Phylogenetic consideration of this case. The Roman numerals are the same as in Fig. 2A. Gray arrow indicates the interpretation of Fig. 2B. Black arrowhead indicates that of Fig. 2C. AN means aneurysm.

た脳動脈瘤は PHA と同側の延髄外側にあり、低形成の対側椎骨動脈が PHA 側に偏倚するというのは推察に過ぎるのかもしれない。いずれにせよ、これらの推察を確定するためには低形成の VA と脳動脈瘤の位置関係の情報が必須である。

PICA の小脳領域への血流は、発生学的に最近獲得されたものであるため、さまざまな形態をとりうる。PICA はもともと神経根軟膜動脈であり、小脳が髄脳を巻き込む際に第四脳室の原始脈絡叢を介した小脳支配領域を併合する<sup>12)</sup>。その小脳虫部への血流はときに両側支配のことがある。本症例では両側の椎骨動脈が低・無形成な

うえに、単一の PICA が両側の小脳半球下面を栄養するという血流の過負荷をもたらす要素が存在しており、これらが今回の脳動脈瘤形成の遠因となっているかもしれない。

本論文の限界としては、PHA の対側の近位椎骨動脈を血管撮影上描出できなかったため、発生機序を正確に考察することが困難なことがある。これらの解剖学的構造をより正確に把握するためには開頭クリッピング術などの外科的な介入が必要かもしれないが、本症例の良好な経過からは瘤内のコイル塞栓術にて再出血を予防することは十分な根拠があると考えられる。

## 結 語

原始遺残舌下動脈および両側椎骨動脈低形成に伴った後下小脳動脈の破裂脳動脈瘤の1例を報告した。本脳動脈瘤は解離性動脈瘤の可能性もあったが、拡張部のコイル塞栓術を行うことによって良好な経過を得た。その発生学的な機序を検討するためには今後のさらなる症例の蓄積と解剖学的検討が必要であると考えられた。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

## 文 献

- 1) Baltsavias GM, Chourmouzi D, Tasiannas N, et al: Ruptured aneurysm of a persistent primitive hypoglossal artery treated by endovascular approach—case report and literature review. *Surg Neurol* **68**:338-343, 2007.
- 2) Bapuraj JR, Ojili V, Khandelwal N, et al: Basilar artery aneurysm treated with coil embolization via persistent primitive hypoglossal artery. *Australas Radiol* **51**:51 Suppl:B340-343, 2007.
- 3) Debaene A, Farnarier P, Dufour M, et al: Hypoglossal artery, a rare abnormal carotid-basilar anastomosis. *Neuroradiology* **4**:233-238, 1972.
- 4) Dilenge D and Heon M: The internal carotid artery, in Newton T.H. and Potts D.G. (ed): *Radiology of the skull and brain, ANGIOGRAPHY*. Saint Louis, The C. V. Mosby company, 1974, Vol 2, 1239-1241.
- 5) Drake CG: Report of World Federation of Neurological Surgeons Committee on a Universal Subarachnoid Hemorrhage Grading Scale. *J Neurosurg* **68**:985-986, 1988.
- 6) Duffill J, Lang DA, Dwyer GN: Subarachnoid haemorrhage in a child from an aneurysm of a persistent primitive hypoglossal artery. *Br J Neurosurg* **10**:607-610, 1996.
- 7) Furtado SV, Reddy K, Khandelwal N, et al: Persistent primitive hypoglossal artery associated with lower basilar artery aneurysm: diagnosis and clinical implications. *Neurol India* **57**:79-81, 2009.
- 8) Huynh-Le P, Matsushima T, Muratani H, et al: Persistent primitive hypoglossal artery associated with proximal posterior inferior cerebellar artery aneurysm. *Surg Neurol* **62**:546-551, 2004.
- 9) Kanai H, Nagai H, Wakabayashi S, et al: A large aneurysm of the persistent primitive hypoglossal artery. *Neurosurgery* **30**:794-797, 1992.
- 10) Kanematsu M, Satoh K, Nakajima N, et al: Ruptured aneurysm arising from a basilar artery fenestration and associated with a persistent primitive hypoglossal artery. Case report and review of the literature. *J Neurosurg* **101**:532-535, 2004.
- 11) Kobayashi M, Akaji K, Tanizaki Y, et al: Posterior inferior cerebellar artery aneurysm associated with persistent primitive hypoglossal artery. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **48**:259-261, 2008.
- 12) Lasjaunias P, Berenstein A, ter Brugge KG (eds): *Surgical Neuroangiography*. Berlin, Springer, 2004, Vol 1, 175-179, 227, 246-252.
- 13) Murayama Y, Fujimoto N, Matsumoto K: Bilateral persistent primitive hypoglossal arteries associated with a large ruptured aneurysm on one side. *Surg Neurol* **24**:498-502, 1985.
- 14) Sakai K, Tanaka Y, Tokushige K, et al: Basilar bifurcation aneurysms associated with persistent primitive hypoglossal artery. *Neurosurg Rev* **21**:290-294, 1998.
- 15) Teasdale G and Jennett B: Assessment of coma and impaired consciousness. A practical scale. *Lancet* **2**:81-84, 1974.
- 16) Yamamoto S, Sunada I, Matsuoka Y, et al: Persistent primitive hypoglossal artery aneurysm—report of two cases. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **31**:199-202, 1991.
- 17) Yokota N, Yokoyama T, Ryu H: Aneurysm of persistent primitive hypoglossal artery. *Br J Neurosurg* **13**:608-610, 1999.

## 要 旨

JNET 6:127-132, 2012

【目的】 原始遺残舌下動脈に関連した破裂脳動脈瘤に対しコイル塞栓術を行った1例を報告する。【症例】 42歳女性。くも膜下出血にて発症した後下小脳動脈瘤。併存する原始遺残舌下動脈経路でコイル塞栓術を行った。動脈瘤は非血管分岐部にあり、真性動脈瘤以外に解離性脳動脈瘤の可能性も考慮されたが、拡張部のみをコイル塞栓することで再出血なく良好な臨床経過を得た。【結論】本動脈瘤は原始遺残舌下動脈および両側椎骨動脈低形成を伴っており、発生解剖学的解釈に一考を要したが、再出血予防として、瘤内のみをコイル塞栓術にて閉塞することは十分な妥当性があると考えられた。その発生学的な機序を明確にするためには今後のさらなる症例検討が必要である。