

頭蓋内椎骨動脈の窓形成に伴う未破裂嚢状脳動脈瘤に対し血管内治療を行った1例

岡村朗健¹⁾ 川本行彦¹⁾ 迫田英一郎¹⁾ 村上太郎¹⁾
原 健司¹⁾ 坂本繁幸²⁾ 岐浦禎展²⁾ 栗栖 薫²⁾

A case of coil-embolized unruptured saccular aneurysm associated with fenestration of the intracranial vertebral artery

Akitake OKAMURA¹⁾ Yukihiro KAWAMOTO¹⁾ Eiichirou SAKODA¹⁾ Taro MURAKAMI¹⁾
Takeshi HARA¹⁾ Shigeyuki SAKAMOTO²⁾ Yoshihiro KIURA²⁾ Kaoru KURISU²⁾

1) Department of Neurosurgery, Hiroshima City Asa Hospital

2) Department of Neurosurgery, Graduate School of Biomedical and Health Sciences, Hiroshima University

●Abstract●

Purpose: Association of cerebral aneurysm with vertebral artery (VA) fenestration is extremely rare. The frequency of VA fenestration is reported as 1-2% and aneurysm formation in conjunction with fenestration other than VA fenestration has been well described. Furthermore, association of aneurysm with "true" VA fenestration excluding VA duplications has been reported in only 1 case. We report a case of unruptured aneurysm associated with "true" VA fenestration treated with coil embolization.

Case presentation: A 70-year-old female was referred to our department with an unruptured cerebral aneurysm of the left VA. The aneurysm enlarged over the 3-year follow-up period. Three-dimensional digital subtraction angiography revealed a fenestration of the left VA associated with the aneurysm at its proximal bifurcation. We treated the aneurysm with coil embolization using balloon-assisted technique with sufficient packing density (23.8%).

Conclusion: High-resolution imaging modalities are required to detect the fenestration of the intracranial VA when associated with aneurysm. Endovascular treatment appears to be effective for aneurysms at this location owing to its complex anatomy, though deliberate consideration of treatment indications is inevitable as the natural history of this condition is not well known.

●Key Words●

aneurysm, coil embolization, fenestrated vertebral artery

1) 広島市立安佐市民病院 脳神経外科

2) 広島大学大学院医歯薬保健学研究院 脳神経外科

<連絡先: 岡村朗健 〒731-0293 広島市安佐北区可部南2-1-1 E-mail: akitake-okamura@hotmail.co.jp >

(Received March 27, 2013 : Accepted September 17, 2013)

緒言

頭蓋内椎骨動脈に窓形成を伴う頻度は1~2%程度で、臨床的にしばしば経験されるが²⁰⁾、その窓形成部に脳動脈瘤を伴う報告は稀である。

椎骨動脈窓形成の発生の由来別にみた動脈瘤の報告は、①胎生期に primitive cervical segmental arteries が連結してできる primitive vertebral artery において、segmental artery が再灌流して生じた窓形成部に1例⁸⁾

(Fig. 1A)、②脳底動脈の原器である ventral longitudinal artery と primitive vertebral artery を結ぶ primitive basilo-vertebral anastomosis が遺残して生じた窓形成部に1例¹⁾ (Fig. 1B)、③頭蓋外椎骨動脈から起始した lateral spinal artery が後下小脳動脈と吻合することで形成する椎骨動脈の duplication による窓形成部に6例^{3,7,9,13,14)}、である (Fig. 1C)。これらは全例が破裂例であることも特徴である。

このたび我々は、未破裂で発見された頭蓋内椎骨動脈

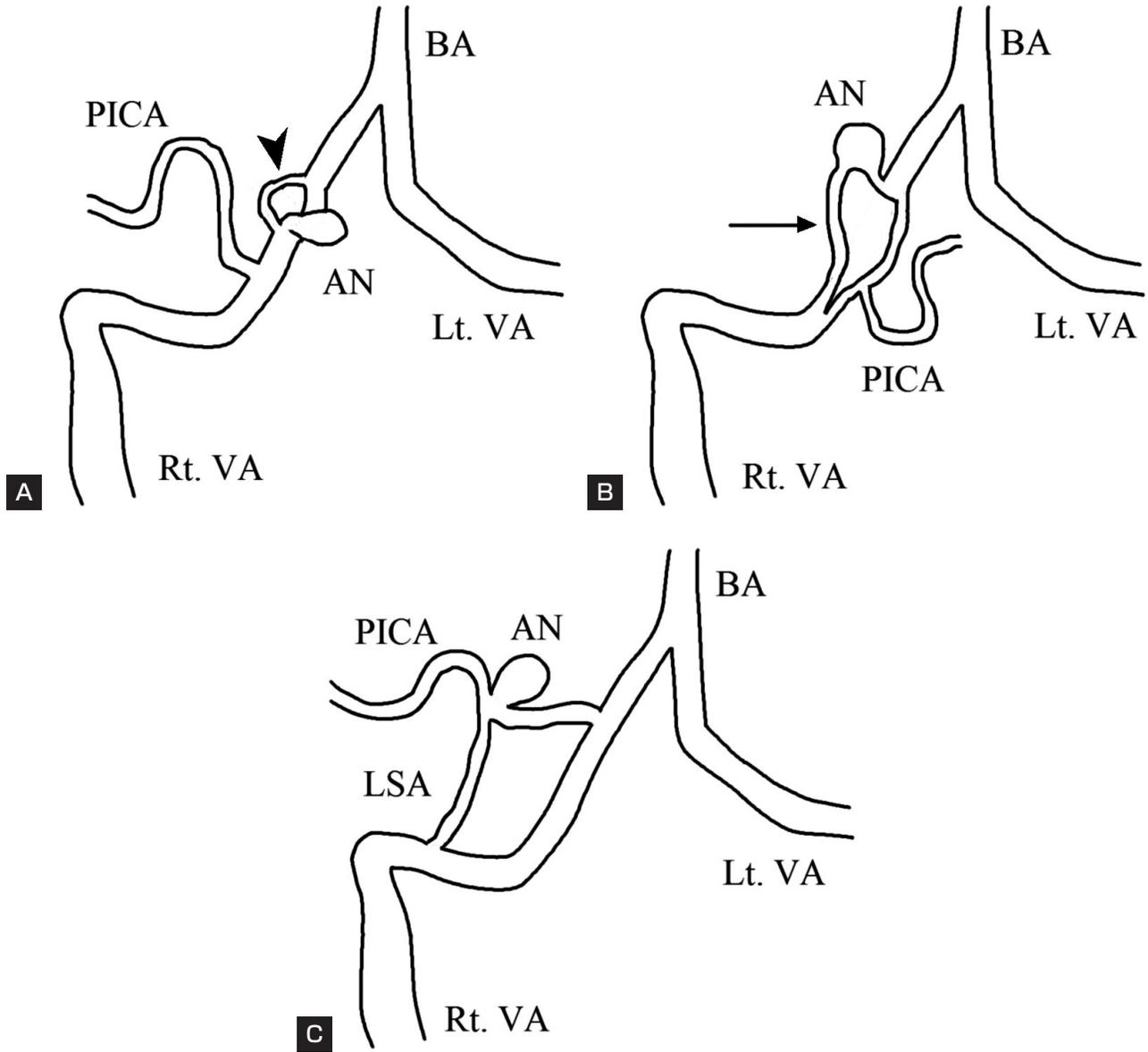


Fig. 1
 Schematic drawing showing the three types of fenestrations of intracranial vertebral arteries (VA) and their associated aneurysms. The segmental recanalization of the primitive VA (arrowhead) forms a true fenestration (A). The remnant vessel of the primitive basilovertbral anastomosis (arrow) or the lateral spinal artery connecting to the posterior inferior cerebellar artery forms duplications (B, C).
 AN: aneurysm, BA: basilar artery, LSA: lateral spinal artery, Lt: left, PICA: posterior inferior cerebellar artery, Rt: right, VA: vertebral artery

の窓形成に伴う脳動脈瘤に対して、破裂予防を目的としたコイル塞栓術を行った症例を経験した。本症例は① primitive vertebral artery の再灌流による窓形成部の脳動脈瘤として Komiyama らの報告に続く 2 例目であると思われた。症例報告を行うと同時に、極めて稀である理由、および治療適応について考察した。

症例呈示

患者：70 歳，女性。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：高齢を理由に受診した近医脳神経外科で施行された頭部 MRI/MRA で、偶然に左椎骨動脈 V4 の未破裂脳動脈瘤を指摘された。以後、3 年間フォローアップ

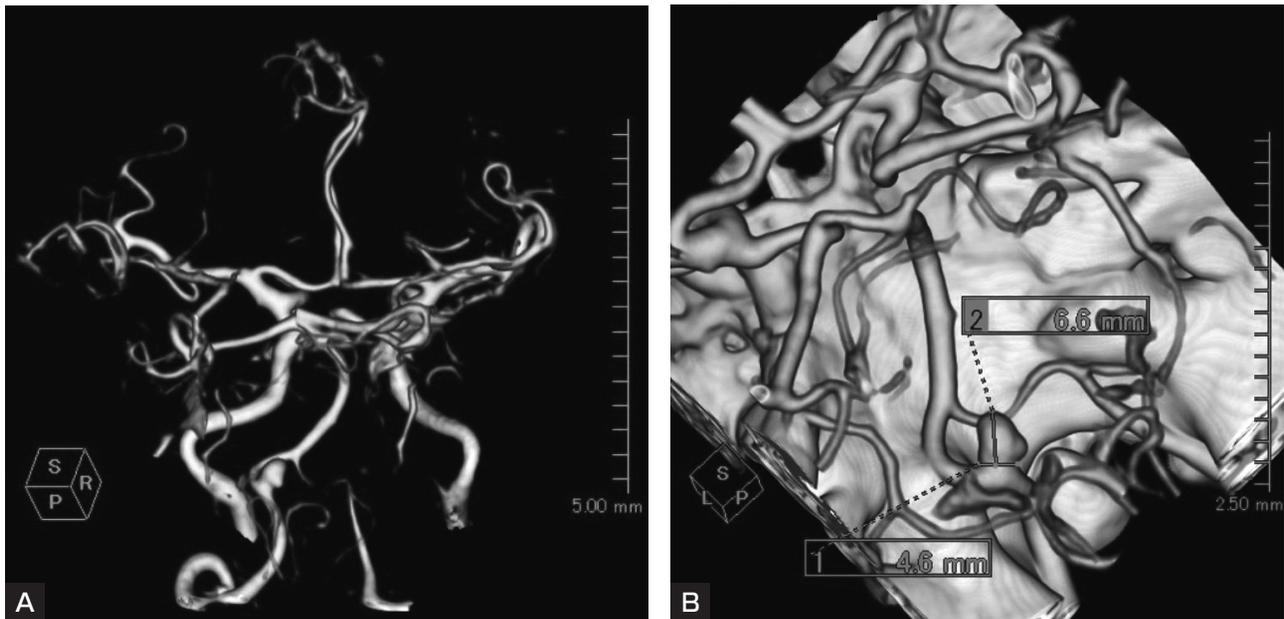


Fig. 2
3D-CTA showing an aneurysm of the left VA (A). The aneurysm neck and dome diameters are 4.6 mm and 6.6 mm, respectively (B).

されたが、増大傾向であったために当科に紹介された。
来院時所見：意識は清明で、特記すべき神経脱落症状を認めなかった。

放射線学的検査：3D-CTAでは左椎骨動脈V4にneck 4.6 mm, dome 6.6 mmの脳動脈瘤を認めた (Fig. 2)。瘤は上方前向きで、不整な茸状であった。椎骨動脈は左が dominant であった。右椎骨動脈および右後交通動脈は発達不良であった。左後下小脳動脈は脳動脈瘤と離れていた。血管内治療の希望あり、施行した。

血管内手術：前処置として、手術当日にアスピリン 300 mg とクロピドグレル 300 mg の投与を行った。局所麻酔下に手術を施行した。3D-DSAでは椎骨動脈に fenestration を認め、その近位端に動脈瘤のネックが位置していた。椎骨動脈窓形成部脳動脈瘤と診断した (Fig. 3)。脳動脈瘤は上方前向きで、外向きに bleb を伴い、大きさは dome 6.12 × 5.79 × 5.75 mm, Neck 3.51 mm, 体積 0.099 mL であった。

右大腿動脈に 6Fr シース 25 cm を入れ替えた後、ヘパリン 4000 単位の動脈注射を行い、activated clotting time (ACT) を前値の 108 から 270 前後に延長させた。ガイディングカテーテル Chaperon 6Fr STR JB2 (テルモ, 東京) を左椎骨動脈 V2 に誘導し、HyperForm (eV3 Covidien, Irvine, CA, USA) を用いたバルーンアシスト

下にコイル塞栓術を行った (Fig. 4)。Target 360 soft 6 mm-10 cm (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) のコイル 2 本 と、Target 360 ULTRA 5 mm-10 cm, Target 360 ULTRA 4 mm-8 cm, Target 360 ULTRA 4 mm-6 cm, Target Helical ULTRA 2 mm-3 cm のコイルを留置し、体積計算で volume embolization ratio (VER) 23.8% であった。椎骨動脈撮影で十分に fenestration が存在する部位が描出されることを確認した。術中出血性や血栓性などの合併症を認めなかった。

術後経過：新規神経脱落症状なく、術後 10 日目に退院した。術後 1 ヶ月、アスピリン 100 mg とクロピドグレル 75 mg の内服を行い、その後はアスピリン 100 mg とした。

考 察

頭蓋内椎骨動脈の窓形成部に動脈瘤を伴うことは非常に稀であり、渉猟の範囲内では 8 例が報告されている^{1,3,7-9,13,14}。これらの窓の由来は、① primitive vertebral artery における segmental artery の再灌流 (Fig. 1A)、② primitive basilo-vertebral anastomosis の遺残 (Fig. 1B)、③ lateral spinal artery による椎骨動脈の duplication (Fig. 1C)、であることはすでに述べた。ただし、厳密には fenestration は発生学的に単一の 1 本の



Fig. 3
3D-DSA revealing a fenestration of the left VA that is distally in contact with the aneurysm (A). The aneurysm neck and dome diameters and height are 3.51 mm, 6.12 mm, and 5.79 mm, respectively (B).



Fig. 4
Left vertebral angiogram after coil embolization. The volume embolization ratio is 23.8%.

血管の segment が 2 本の管腔を形成していると定義され、異なる 2 本の血管が遺残した場合は duplication と定義されるので¹⁰⁾、狭義の fenestration は Komiyama らの症例 1 例のみとなる。本症例の fenestration は 3D-DSA で初めて同定できた小さな fenestration であり、かつその走行は正常であった。窓形成の原因は① primitive vertebral artery における segmental artery の再灌流で、狭義の椎骨動脈窓形成に伴った脳動脈瘤として Komiyama らの報告に続く 2 例目と思われる。

頭蓋内血管の窓形成部位に脳動脈瘤ができる機序として fenestration 近位部の中膜欠損や血行力学的ストレスなど Willis 輪と同様の機序が想定されており^{4,5)}、前大脳動脈などの窓形成部位に脳動脈瘤を生じる頻度について高いものでは 18~28% と報告されている^{6,20)}。一方、頭蓋内椎骨動脈に窓形成を伴う頻度は 1.4% (1 個 / 72 椎骨動脈) と臨床的にしばしば遭遇するにも関わらず²⁰⁾、動脈瘤を伴う症例は非常に稀である。Miyazaki らの椎骨動脈に窓形成を伴う 56 例のレビューでは窓形成に脳動脈瘤を伴う症例は 1 例も無く¹²⁾、Sanders らの 10 例の経験中にも 1 例も存在しなかった¹⁶⁾。

Table Reported detection rate of fenestration of the cerebral arteries with each modality.

Author	Modality	Identity rate
Teal 1973	2D-DSA	0.1% (5 / 4500 cases)
Sanders 1993	2D-DSA	0.7% (37 / 5190 cases)
Sun 2012	3T-MRA	3% (141 / 4652 cases)
Bharatha 2008	3D-CTA	11% (53 / 504 cases)
van Rooij 2009	3D-DSA	28% (59 / 208 cases)

CTA: computed tomographic angiography, D: dimensional, DSA: digital subtraction angiography, 3T-MRA: magnetic resonance angiography with 3 Tesla system

このように稀であることの原因の一つは fenestration の小ささと, modality の空間分解能にあると思われる。本症例の先行報告である Komiyama らの症例は窓形成を 2D-DSA で同定できているが, 注意深い読影を強調している⁸⁾。本症例の fenestration は 2D-DSA でも 3D-CTA でも同定できず, 3D-DSA で初めて同定できた小さな fenestration であった。Modality ごとの fenestration の同定能力を比較するため, 脳動脈評価の際に fenestration に遭遇する確率の報告を参照する (Table)。2D-DSA で 0.1% (5 例 / 4500 例)¹⁸⁾ ~ 0.7% (37 例 / 5190 例)¹⁶⁾, MRA (3 Tesla system) で 3% (141 / 4652 例)¹⁷⁾, 3D-CTA で 11% (53 例 / 504 例)²⁾, 3D-DSA で 28% (59 例 / 208 例) と報告されている²⁰⁾。また, 3D-DSA で同定できた fenestration のうち 2D-DSA で同定できたのは 16% (10 個 / 61 個) であったとも報告されている²⁰⁾。MRA や 3D-CTA は低侵襲に頭蓋内血管の評価が可能で頻用されているが窓形成の同定率が乏しい。一方, 3D-DSA は最も空間分解能が優れているが, 破裂例など症例を選んで施行されるのが一般的である。このように頭蓋内椎骨動脈の脳動脈瘤の原因としての窓形成が見逃がされることは, 特に未破裂の症例では, 稀ではないと思われる。

治療として, 本症例に対してはバルーンアシスト下のコイル塞栓術を行った。Morita らの literature review では duplication も含めた 8 例の広義の fenestration について, 同部位の治療を考察している¹³⁾。全例が破裂症例で, 7 例 (87.5%) で血管内治療を初めに選択し, 5 例 (62.5%) で完遂した。その後, 2 例で開頭術に術式を変更した。初めから開頭手術を企図したのは 1 例 (12.5%) のみであった。このように, 頭蓋内椎骨動脈の窓形成に脳動脈瘤を伴う場合, 治療法として血管内治療が好まれる傾向にある。今後も血管内治療が第一選択となるものと思わ

れる。

本症例は大きさが 6.1 mm で, 形は不整であり, bleb を伴い, かつ大きさも増大傾向にあったため, 治療適応があるものと思われた^{11,15,19)}。治療に際しては, 症状のない未破裂症例であること, 右後交通動脈および右椎骨動脈の発達不良である点が問題であった。左椎骨動脈窓形成部の損傷・血栓形成は脳底動脈の虚血を生じる恐れがあり, 十分な抗血小板療法・抗凝固療法を行った。また, コイルの逸脱が無いよう, 細心の注意を払った。

椎骨動脈の窓形成部の脳動脈瘤に対する duplication も含めた 8 例の広義の fenestration はいずれも破裂症例で, 未破裂症例に対する治療適応を検討した報告は渉猟の範囲内では見当たらなかった。今後, 本症例と同様に, 椎骨動脈の窓形成に脳動脈瘤を伴った症例が未破裂で発見された場合, 動脈瘤の形状を十分に評価して慎重に治療適応を検討することはもちろんだが, ほとんどの症例が破裂症例として報告されてきたことを考慮すれば積極的に治療適応とするべきかもしれない。

結 語

未破裂で発見された頭蓋内椎骨動脈の窓形成に伴う脳動脈瘤に対して, 破裂予防を目的としたコイル塞栓術を行った症例を経験した。椎骨動脈の窓形成を伴う脳動脈瘤は, 原因となる窓形成部の同定が困難で, 高空間分解能のモダリティが必要である。また, 自然歴が不明であり, 治療を慎重に検討すべきである。

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) Antunes JL, Valença A, Ferro JM, et al: Ruptured saccular aneurysm associated with duplication of the vertebral artery. *Surg Neurol* 36:207-209, 1991.
- 2) Bharatha A, Aviv RI, White J, et al: Intracranial arterial fenestrations: frequency on CT angiography and association with other vascular lesions. *Surg Radiol Anat* 30:397-401, 2008.
- 3) Chen CC, Bellon RJ, Ogilvy CS, et al: Aneurysms of the lateral spinal artery: report of two cases. *Neurosurgery* 48:949-953, 2001.
- 4) Crompton MR: The pathology of ruptured middle-cerebral aneurysms with special reference to the differences between the sexes. *Lancet* 2:421-425, 1962.
- 5) Finlay HM, Canham PB: The layered fabric of cerebral artery fenestrations. *Stroke* 25:1799-1806, 1994.
- 6) Friedlander RM, Ogilvy CS: Aneurysmal subarachnoid

- hemorrhage in a patient with bilateral A1 fenestrations associated with an azygos anterior cerebral artery. Case report and literature review. *J Neurosurg* **84**:681-684, 1996.
- 7) 堀口健太郎, 小林英一, 三枝敬史, 他: 頭蓋内外より起始する後下小脳動脈に生じた動脈瘤に対する血管内治療の1例. *脳卒中* **30**:521-525, 2008.
 - 8) Komiyama M, Nakajima H, Nishikawa M, et al: Treatment of a saccular aneurysm at the fenestration of the intracranial vertebral artery with Guglielmi detachable coils. *Acta Neurochir (Wien)* **141**:1125-1127, 1999.
 - 9) Kubota H, Suehiro E, Yoneda H, et al: Lateral spinal artery aneurysm associated with a posterior inferior cerebellar artery main trunk occlusion. Case illustration. *J Neurosurg Spine* **4**:347, 2006.
 - 10) Lasjaunias PL: Segmental identity and vulnerability in cerebral arteries. *Interv Neuroradiol* **6**:113-124, 2000.
 - 11) Matsubara S, Hadeishi H, Suzuki A, et al: Incidence and risk factors for the growth of unruptured cerebral aneurysms: observation using serial computerized tomography angiography. *J Neurosurg* **101**:908-914, 2004.
 - 12) Miyazaki S, Kamata K, Yamaura A: Multiple aneurysms of the vertebrobasilar system associated with fenestration of the vertebral artery. *Surg Neurol* **15**:192-195, 1981.
 - 13) Morita T, Takazawa H, Narisawa A, et al: Operated case of a ruptured aneurysm arising from fenestration of the vertebral artery. *No Shinkei Geka* **40**:221-227, 2012.
 - 14) Pasco A, Thouveny F, Papon X, et al: Ruptured aneurysm on a double origin of the posterior inferior cerebellar artery: a pathological entity in an anatomical variation. Report of two cases and review of the literature. *J Neurosurg* **96**:127-131, 2002.
 - 15) Raghavan ML, Ma B, Harbaugh RE: Quantified aneurysm shape and rupture risk. *J Neurosurg* **102**:355-362, 2005.
 - 16) Sanders WP, Sorek PA, Mehta BA: Fenestration of intracranial arteries with special attention to associated aneurysms and other anomalies. *AJNR* **14**:675-680, 1993.
 - 17) Sun ZK, Li M, Li MH, et al: Fenestrations accompanied by intracranial aneurysms assessed with magnetic resonance angiography. *Neurol India* **60**:45-49, 2012.
 - 18) Teal JS, Rumbaugh CL, Bergeron RT, et al: Angiographic demonstration of fenestrations of the intradural intracranial arteries. *Radiology* **106**:123-126, 1973.
 - 19) UCAS Japan Investigators, Morita A, Kirino T, et al: The natural course of unruptured cerebral aneurysms in a Japanese cohort. *N Engl J Med* **366**:2474-2482, 2012.
 - 20) van Rooij SB, van Rooij WJ, Sluzewski M, et al: Fenestrations of intracranial arteries detected with 3D rotational angiography. *AJNR* **30**:1347-1350, 2009.

要 旨

JNET 7:275-280, 2013

【目的】 未破裂で発見された頭蓋内椎骨動脈の窓形成に伴う脳動脈瘤に対して、破裂予防を目的としたコイル塞栓術を行った症例を経験したので報告する。**【症例】** 症例は70歳女性。近医脳神経外科で偶然に左椎骨動脈V4の未破裂脳動脈瘤を指摘された。3年間フォローアップされたが、増大傾向であったために当科に紹介された。3D-DSAでは椎骨動脈にfenestrationを認め、その近位端に動脈瘤のネックが位置していた。椎骨動脈窓形成部脳動脈瘤と診断した。これに対してバルーンアシスト下にコイル塞栓術を行った (volume embolization ratio 23.8%)。**【結語】** 椎骨動脈の窓形成に伴う脳動脈瘤は、原因となる窓形成部の同定が困難で、高空間分解能のモダリティが必要である。また、自然歴が不明で、治療を慎重に検討すべきである。