

出血源として特定困難であった破裂末梢性解離性上小脳動脈瘤の1例

武井 淳^{1,2)} 西村健吾¹⁾ 石橋敏寛¹⁾ 村山雄一¹⁾ 結城一郎¹⁾
 荒川秀樹¹⁾ 加藤正高¹⁾ 見崎孝一¹⁾ 大橋洋輝²⁾ 常喜達裕²⁾ 阿部俊昭²⁾

A case of ruptured peripheral dissecting superior cerebellar artery aneurysm for which the source of bleeding was difficult to confirm

Jun TAKEI^{1,2)} Kengo NISHIMURA¹⁾ Toshihiro ISHIBASHI¹⁾ Yuichi MURAYAMA¹⁾ Ichiro YUKI¹⁾
 Hideki ARAKAWA¹⁾ Masataka KATO¹⁾ Koichi MISAKI¹⁾ Hiroki OHASHI²⁾ Tatsuhiro JOKI²⁾ Toshiaki ABE²⁾

1) Division of Endovascular Neurosurgery, Department of Neurosurgery, Tokyo Jikei University School of Medicine
 2) Department of Neurosurgery, Tokyo Jikei University School of Medicine

●Abstract●

Objective: We report a case of ruptured peripheral dissecting superior cerebellar artery (SCA) aneurysm as a rare and difficult to confirm source of subarachnoid hemorrhage (SAH).

Case presentation: A 55-year-old male patient was admitted to our hospital with impaired level of consciousness. Although the patient's CT showed SAH, no intra-cranial arterial saccular aneurysm was seen on DSA. However, there was a suspicion of morphological changes in the lateral pontomesencephalic segment of the left SCA. An MRI 4 days after onset showed cerebellar infarction in the left SCA territory. This raised reasonable suspicion that the SAH was caused by a ruptured dissecting SCA. On day 6 after onset, a parent artery occlusion of the left SCA was performed. After the operation a transient right conjugate gaze deviation was observed.

Conclusion: A dissecting SCA may be the possible cause of SAH. We expect that parent artery occlusion can be an effective method of management, as it is in other locations for this type of pathology.

●Key Words●

dissecting aneurysm, subarachnoid hemorrhage (SAH), superior cerebellar artery (SCA)

1) 東京慈恵会医科大学付属病院 脳神経外科 脳血管内治療部 (Received July 15, 2013 : Accepted September 30, 2013)
 2) 同 脳神経外科
 <連絡先: 武井 淳 〒105-0003 東京都港区西新橋 3-25-8 E-mail: jun.takei1986@gmail.com>

緒言

解離性脳動脈瘤に関する報告は、本疾患に対する関心の高まりと診断技術の向上に伴い増加している^{3,4)}。その多くは椎骨動脈の解離性動脈瘤に関する報告である。椎骨脳底動脈以外の末梢部に発生した解離性脳動脈瘤の報告は少なく、特にくも膜下出血 (subarachnoid hemorrhage; SAH) で発症した上小脳動脈 (superior cerebellar artery; SCA) 解離の報告は少ない。今回、我々は出血源として特定困難であった破裂末梢性解離性上小脳動脈瘤の1例を経験したので報告する。

症例呈示

患者は55歳、男性。突然の意識障害で発症し当院へ救急搬送された。既往歴、家族歴は特記事項なし。意識レベルはGlasgow Coma Scale (GCS) E3V2M5、命令に従わず、四肢を非合目的に動かしていた。単純頭部CTで脳幹前面に強いSAHおよび急性水頭症を認めた (Fig. 1)。Hunt & Kosnik grade III, World Federation of Neurosurgical Societies (WFNS) grade IV, Fisher group 3と診断した。引き続き施行した脳血管造影検査では、明らかな囊状動脈瘤を認めなかった。

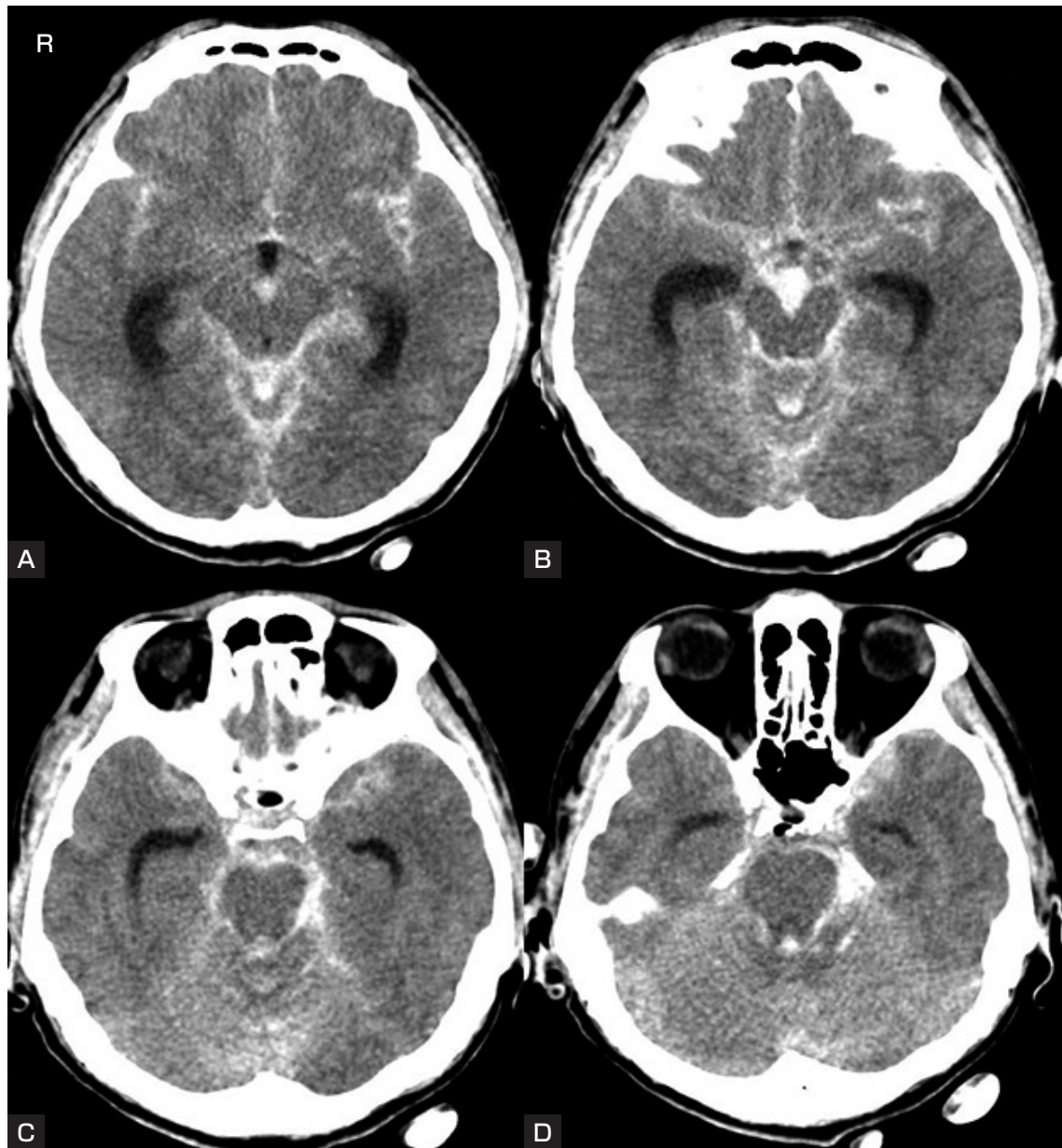


Fig. 1
CT on admission showing subarachnoid hemorrhage predominant in the perimesencephalic cisterns.

右椎骨動脈造影で左 SCA の lateral pontomesencephalic segment に径 3 mm の紡錘状の拡張所見を認めたが、この時点で破裂部位の確定診断に至らず、急性水頭症に対して脳室ドレナージのみを施行し待機的観察とした (Fig. 2)。第 3 病日に再度施行した脳血管造影検査でも、同様の所見であった。第 4 病日に施行した頭部 MRI 検査で左 SCA 領域に diffusion-weighted image (DWI) で高信号領域を認めた (Fig. 3)。この時点での神経症状は、意識レベル GCS E3V5M6、構音障害、下肢に優位な左片側の運動失調を認めた。

以上の経過から、左 SCA の紡錘状の拡張所見は出血および虚血を来した解離性上小脳動脈瘤と診断し、第 6 病日に動脈瘤塞栓および親血管閉塞を目的とした血管内手術を施行した。全身麻酔下に右椎骨動脈に 5Fr Shuttle Sheath (Cook Medical, Bloomington, IN, USA) を留置した。HyperForm (eV3 Covidien, Irvine, CA, USA) 4 mm × 7 mm を脳底動脈に待機させ、microcatheter (Excelsior SL-10; Stryker, Kalamazoo, MI, USA) を左 SCA に誘導した。解離部より遠位側へ microcatheter 先端を留置したのち、Target coil 2 mm × 3 cm (Stryker) をアンカ

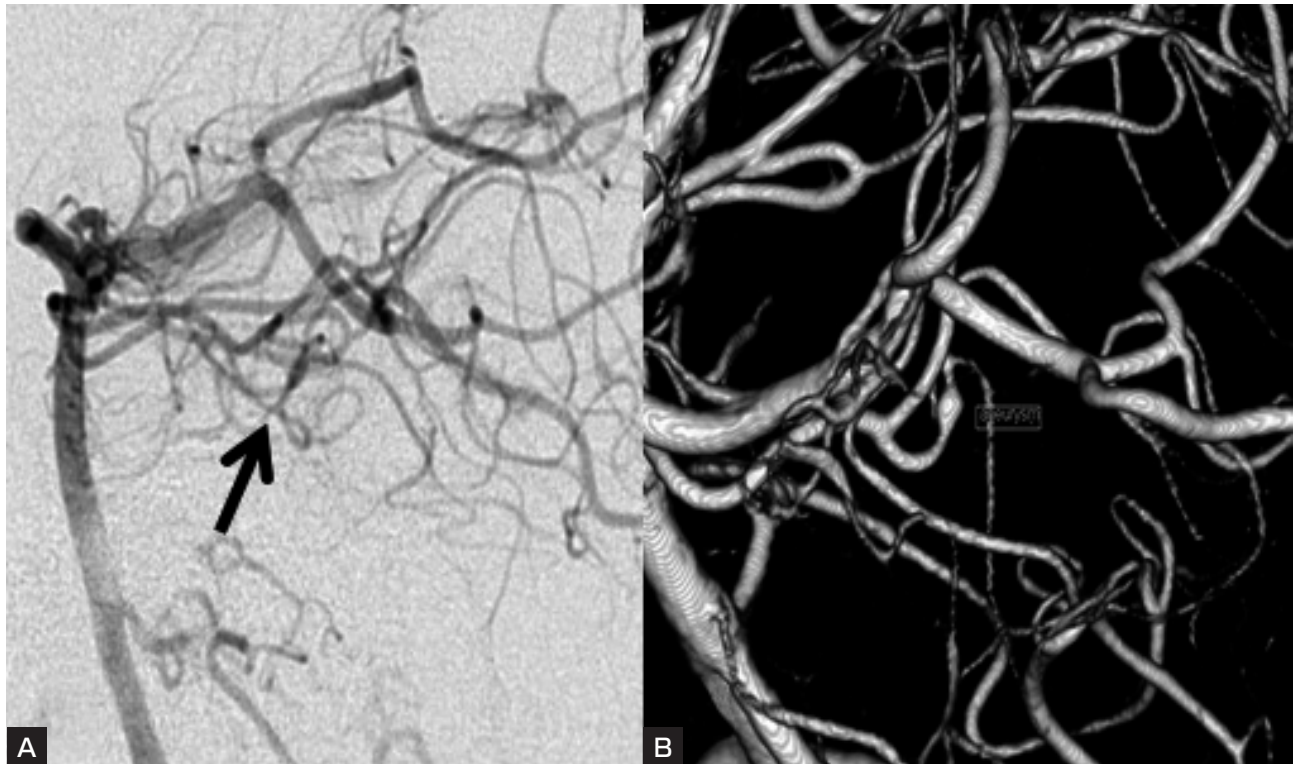


Fig. 2
Vertebral angiography demonstrating dilation and stenosis of the lateral pontomesencephalic segment of the left superior cerebellar artery (SCA).

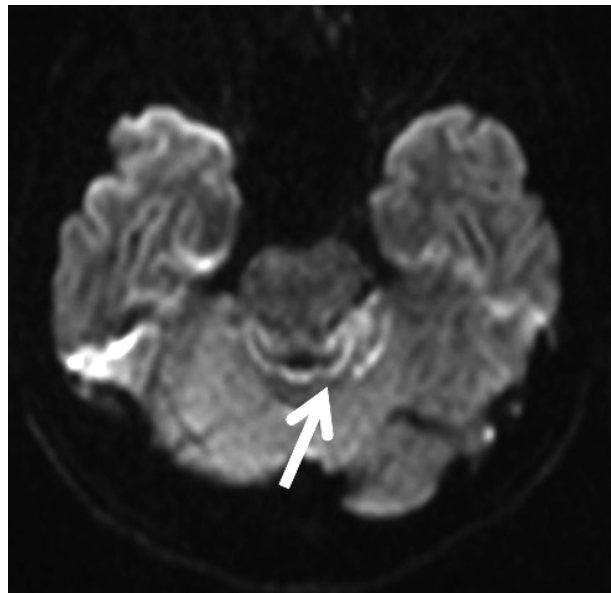


Fig. 3
An axial diffusion-weighted image (DWI) MRI 4 days after onset showing infarcts in the territory of the left SCA.

ーとして遠位側へ留置し解離部近位側まで合計6本使用し閉塞した (Fig. 4). 血管造影で解離部より先が造影されないことを確認し手技を終了した. 術後に一過性の右共同偏視, 左方視時の水平性眼振を認めたほかは, 新たな神経脱落症状は認めなかった. 第7病日に施行した頭部MRIで左SCA領域のDWIでの高信号領域の拡大を認めた (Fig. 5).

術前より認めた構音障害, 左上肢運動失調のためリハビリテーションを行い, 発症44日目にmodified Rankin Scale (mRS) 4で転院した. 発症90日の時点ではmRS 3まで改善した.

考 察

上小脳動脈瘤は全動脈瘤の1.7%といわれ, その中でも末梢性の上小脳動脈瘤は0.2%といわれる. Ana Rodríguez-Hernándezらの報告¹⁸⁾では, 末梢性上小脳動脈瘤は2789例中2例と極めて稀である¹⁸⁾. また, 末梢性上小脳動脈瘤の形状は囊状動脈瘤の報告例が多い^{12,16)}. 末梢性解離性上小脳動脈瘤は, 脳虚血症状で発症する例と出血形式で発症する症例とに大別されるが,

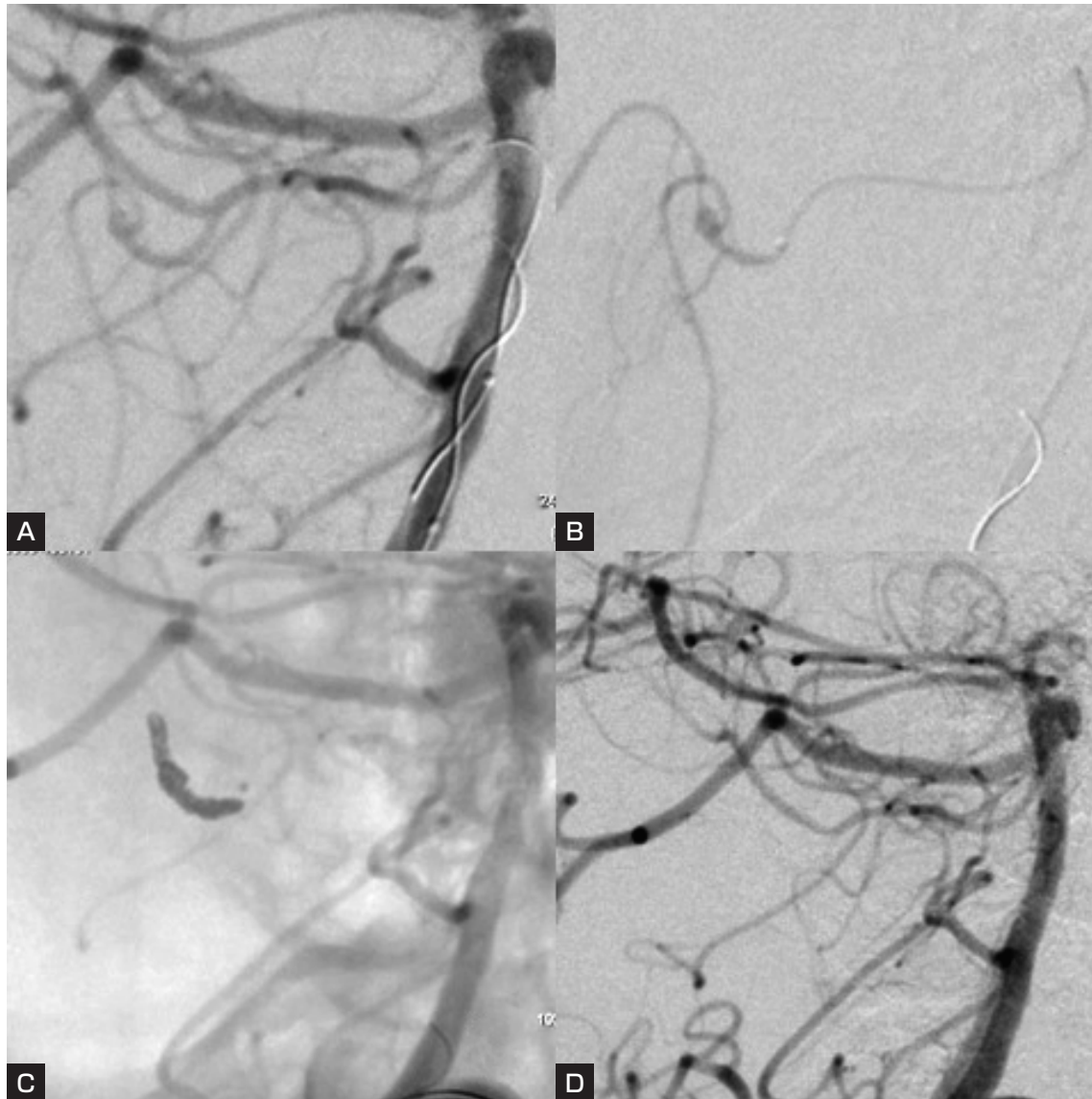


Fig. 4

A : Left Vertebral angiogram (lateral view) showing distal aneurysm of the left SCA.
B : Intra-aneurysmal contrast injection showing the aneurysm and the distal branches.
C, D : Lateral views after parent artery occlusion.

今回我々が経験した SAH で発症した末梢性上小脳動脈の解離性動脈瘤は渉猟した限り 10 例と極めて稀な症例と考えられる^{1,6,9,10,14,15}。

くも膜下出血の 15-20% は初回脳血管撮影にて出血源が特定されない¹⁷。Dalyai らは、初回脳血管撮影で出血源が同定できなかった 254 例中 10 例 (3.9%) は 1 週間後の脳血管撮影で破裂脳動脈瘤が発見されたと報告している²⁾。これら 10 例のうち末梢性脳動脈瘤は 3 例である。本症例では SAH 発症当日に施行した DSA で上小脳動脈末梢部に pearl and string 様の血管壁不整を認め

た。後方視的には入院時の頭部 CT で左迂回槽に優位な SAH を認めるが、その時点では責任病変の確診に至らず待機的観察とした。発症 3 日目に施行した DSA でも同様の形態異常を認めた。発症 4 日目に施行した頭部 MRI にて左小脳脚での高信号領域を認め、左 SCA 領域の虚血性変化を伴っていることから、解離性上小脳動脈瘤破裂による SAH との診断に至った。出血源不詳のくも膜下出血の要因として、本例のような末梢性解離性脳動脈瘤を一考することは重要と考える。

上小脳動脈領域梗塞は構音障害、下肢優位の運動失調

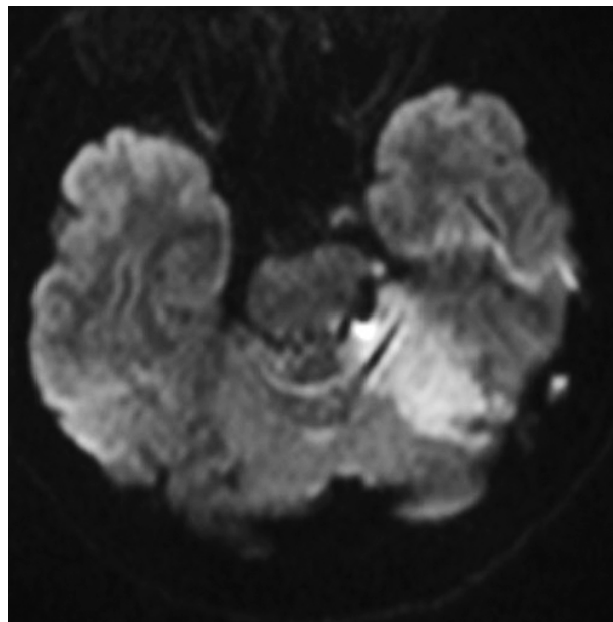


Fig. 5
An axial postoperative DWI MRI showing expansion of infarcts in the territory of the left SCA.

を特徴としており¹¹⁾、本症例でも同様の症状を認めた。治療時期については、本症例では発症6日目に手術を施行したが、自験例を含めた11例のうち発症2日以内に手術に至ったのは3例で¹⁵⁾、5例は発症3-10日に手術が施行されている。このようにSAHで発症したSCA末梢部解離性動脈瘤は出血部位の確定診断が難しく、治療が遅れる傾向にあると言える。

一般的に出血発症の解離性脳動脈瘤は急性期での再出血の確率が高く、その場合の予後は悪いため外科的治療が推奨されている^{13,19)}。外科的治療には開頭術によるtrapping, proximal clippingや血管内治療によるendovascular trappingなどがある。Proximal clipping後の術後再出血やtrapping後の小脳および脳幹梗塞のリスクもまた報告されている^{4,13,19,20)}。今回我々は動脈瘤を含めた上小脳動脈のコイル塞栓術を選択した。

SCA hemispheric branchおよびmarginal branchの動脈瘤治療に関してはさまざまな報告がある。一般的にtrappingおよびproximal ligationを施行しても神経学的脱落症状の出現は少ないとされる^{5,8)}。その理由として、hemispheric branchの末梢支配域とvermian branchまたはmarginal branchの末梢支配域の重複や、marginal branchと前下小脳動脈末梢との間にanastomosisの存在⁷⁾、SCA末梢支配域にsilent areaが比較的多いこと⁸⁾

が考えられる。しかしながら、本症例では術後MRIでSCA末梢支配域に脳虚血拡大を示唆する所見を認めた。これはSCA caudal trunkより塞栓せざるを得なかったこと、および左前下小脳動脈がやや低形成であったことが原因の一つではないかと推測される。

SAHで発症した上小脳動脈解離性動脈瘤の報告に関し治療方法、予後について比較検討した(Table 1)。平均年齢は53.2歳、性別は男性4名、女性7名であった。治療方法は直達手術例が3例、血管内治療例が8例であった。直達手術の内訳はtrapping and STA-SCA bypass 1例、body clipping and wrapping 1例、coating 1例であった。血管内治療はすべてparent artery occlusionが行われた。予後はGlasgow Outcome Scale (GOS)で評価を行った。直達手術群および血管内治療群の2群に分け、その傾向を示す(Table 2)。直達手術群と比較して、血管内治療群の予後は劣らない成績であった。本動脈瘤に対する血管内治療の利点とは、SAH急性期の脳腫脹に手術手技が影響を受けないことがあげられる。一方で、脳幹部穿通枝の確認ができないことは血管内治療の欠点である。SCAは主幹部およびrostral, caudal trunkそれぞれの分岐部より近位に穿通枝の分枝が存在する。主幹部では平均2本、rostral trunkからは平均5本、caudal trunkからは平均2本分岐しているとされる⁷⁾。血管内治療によるparent artery occlusionの際には、これら脳幹部穿通枝の温存のためには可能な限り末梢のみを閉塞する工夫が必要である。

末梢部SCAの解離性脳動脈瘤破裂によるSAHに対しては、報告例が少ないため定型的な治療方針は定まっていない¹⁰⁾。現在までの報告では直達手術群および血管内治療群ともに神経学的予後に明らかな差を認めず、本症例のように親血管を含む動脈瘤塞栓術は有効な治療であると考えられた。

結 語

1. 出血源として特定困難であった破裂末梢性上小脳動脈瘤の1例を報告した。
2. 血管内治療による親血管閉塞術は本動脈瘤治療の有用な選択肢である。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

Table 1 Clinical characteristics of eleven patients with dissecting aneurysms.

Author (year)	Age/Sex	Site	Angiogram	Procedure	Procedure	Outcome (GOS)	Therapy (day after onset)
Ikeda et al. (1999) ⁹⁾	37/F	ant.pont.	fusiform dilatation	DS	body clipping&wrapping	5	day1
Mizutani et al. (2001) ¹⁴⁾	34/F	N.A.	disecting entry only	DS	trapping&STA-SCA	-	day23
Araki et al. (2002) ¹⁾	64/F	ant.pont.	aneurysmal dilatation	DS	coating	2	day31
Gotoh et al. (2004) ⁶⁾	45/M	ant.pont.	fusiform dilatation	EVS	parent artery occlusion	5	day0
Iko et al. (2007) ¹⁰⁾	68/M	Cerebellomesencephalic	pearl and string	EVS	parent artery occlusion	5	day0
Oran et al. (2009) ¹⁵⁾	54/F	N.A.	pearl and string	EVS	parent artery occlusion	5	day3-10
Oran et al. (2009)	56/M	N.A.	fusiform	EVS	parent artery occlusion	4	day3-10
Oran et al. (2009)	65/F	N.A.	pearl and string	EVS	parent artery occlusion	4	day3-10
Oran et al. (2009)	45/F	N.A.	fusiform	EVS	parent artery occlusion	4	day3-10
Oran et al. (2009)	42/F	N.A.	fusiform	EVS	parent artery occlusion	5	day3-10
Present case	55/M	lat.pont.	pearl and string	EVS	parent artery occlusion	3	day6

ant.pont.: anterior pontomesencephalic segment, DS: direct surgery, EVS: endovascular surgery, GOS: Glasgow Outcome Scale lat.pont.: lateral pontomesencephalic segment, N.A.: not applicable, SCA: superior cerebellar artery, STA: superficial temporal artery

Table 2 Summary of reported SCA aneurysm patients.

	Direct surgery	Endovascular surgery
No. of cases	3	8
Age	45.0	53.8
Sex	Male 0, Female 3	Male 4, Female 4
GOS (mean)	3.5	4.4

GOS: Glasgow Outcome Scale

文 献

- Araki T, Fujiwara H, Murata H, et al: Subarachnoid hemorrhage due to ruptured dissecting aneurysm of peripheral superior cerebellar artery. *No Shinkei Geka* **30**:1345-1351, 2002.
- Dalyai R, Chalouhi N, Theofanis T, et al: Subarachnoid hemorrhage with negative initial catheter angiography: a review of 254 cases evaluating patient clinical outcome and efficacy of short- and Long-term repeat angiography. *Neurosurgery* **72**:646-652, 2013.
- Fransen P, De Tribolet N: Dissecting aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery. *Br J Neurosurg* **8**:381-386, 1994.
- Friedman AH, Drake CG: Subarachnoid hemorrhage from intracranial dissecting aneurysm. *J Neurosurg* **60**:325-334, 1984.
- Fukui S, Minamida Y, Kubota T, et al: A case of peripheral, fusiform type aneurysm originating from the superior cerebellar artery. *No Shinkei Geka* **26**:163-167, 1998.
- Gotoh H, Takahashi T, Shimizu H, et al: Dissection of the superior cerebellar artery: a report of two cases and review of the literature. *J Clin Neurosci* **11**:196-199, 2004.
- Hardy DG, Peace DA, Rhoton AL Jr: Microsurgical anatomy of the superior cerebellar artery. *Neurosurgery* **6**:10-28, 1980.
- Hidaka M, Shimoda M, Shibuya N, et al: Peripheral Superior Cerebellar Artery Aneurysm. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **29**:533-537, 1989.
- Ikeda K, Shoin K, Taguchi H, et al: Postpartum dissecting aneurysm of the superior cerebellar artery--case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **39**:852-857, 1999.
- Iko M, Kazekawa K, Aikawa H, et al: Case of ruptured superior cerebellar artery dissection treated by endovascular embolization. *Brain Nerve* **59**:72-75, 2007.
- 桑原 聡, 平山恵造, 小島重幸, 他: 上小脳動脈領域梗塞の臨床的特徴. *脳卒中* **14**:159-165, 1992.
- Mabuchi S, Kamiyama H, Abe H: Distal aneurysms of the superior cerebellar artery and posterior inferior cerebellar artery feeding an associated arteriovenous malformation: case report. *Neurosurgery* **30**:284-287, 1992.
- Mizutani T, Aruga T, Kirino T, et al: Recurrent subarachnoid hemorrhage from untreated ruptured vertebralbasilar dissecting aneurysms. *Neurosurgery* **36**:905-913, 1995.
- Mizutani T, Kojima H, Asamoto S, et al: Pathological mechanism and three-dimensional structure of cerebral dissecting aneurysms. *J Neurosurg* **94**:712-717, 2001.
- Oran I, Cinar C, Yagci B, et al: Ruptured dissecting aneurysms arising from non-vertebral arteries of the posterior circulation: endovascular treatment perspective. *Diagn Interv Radiol* **15**:159-165, 2009.
- Papo I, Caruselli G, Salvolini U: Aneurysm of the superior

- cerebellar artery. *Surg Neurol* 7:15-17, 1977.
- 17) Rinkel GJ, van Gijn J, Wijidicks EF: Subarachnoid hemorrhage without detectable aneurysm. A review of the causes. *Stroke* 24:1403-1409, 1993.
- 18) Rodríguez-Hernández A, Zador Z, Rodríguez Mena R, et al: Distal aneurysms of intracranial arteries: application of numerical nomenclature, predilection for cerebellar arteries, and results of surgical management. *World Neurosurg* 80:103-112, 2012.
- 19) 山浦 晶, 吉本高志, 橋本信夫, 他: 非外傷性頭蓋内解離性動脈病変の全国調査 (第2報). *脳卒中の外科* 26:87-95, 1998.
- 20) Yamaura I, Tani E, Yokota M, et al: Endovascular treatment of ruptured dissecting aneurysms aimed at occlusion of the dissected site by using Guglielmi detachable coils. *J Neurosurg* 90:853-856, 1999.

JNET 7:323-329, 2013

要 旨

【目的】出血源として特定困難であった破裂末梢性解離性上小脳動脈瘤の1例を認めたので報告する。**【症例】**55歳, 男性. 意識障害で発症し, 当院へ救急搬送となった. 頭部CTではくも膜下出血を認めたが, 脳血管造影検査で主幹動脈に明らかな囊状動脈瘤を認めなかった. 左上小脳動脈末梢部に形状変化を認めたが, 確定診断に至らず待機的観察となった. 発症3日後に施行した3D-DSAでも左上小脳動脈末梢部の形状変化を認め, MRIで左上小脳動脈領域に梗塞を認めることから, 左上小脳動脈解離性脳動脈瘤破裂によるくも膜下出血と判断した. 発症6日後, 動脈瘤を含めた上小脳動脈の閉塞術を施行した. 術後, 画像上に左上小脳動脈領域脳梗塞の拡大と一過性の右共同偏視を認めた。**【結語】**後頭蓋窩のくも膜下出血の原因として上小脳動脈解離を考慮する必要がある. 破裂解離性上小脳動脈瘤に対する治療として親血管を含む動脈瘤塞栓術は有効な治療であると考えられた.