

症例報告

外傷性くも膜下出血の保存的加療中に
脳内出血で発症した中硬膜動脈仮性動脈瘤の一例

木村誠吾¹ 矢木亮吉² 玉置亮¹ 小川大二¹ 萬野理¹ 谷口博克¹ 黒岩敏彦²
弘善会矢木脳神経外科病院¹ 大阪医科大学脳神経外科・血管内治療科²

連絡著者

木村誠吾 弘善会矢木脳神経外科病院 脳神経外科
537-0011 大阪府大阪市東成区東今里2-12-13
06-6978-2307
stillsixteendanganok@gmail.com

キーワード

中硬膜動脈仮性動脈瘤 脳内出血 開頭血腫除去術 動脈瘤塞栓術

本論文を、日本脳神経血管内治療学会機関誌 JNET Journal of Neuroendovascular Therapy に投稿するにあたり、筆頭著者、共著者によって、国内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないことを誓約致します。

「要旨」

外傷性くも膜下出血、急性硬膜下血腫、脳挫傷に対する保存的加療中に外傷性中硬膜動脈仮性動脈瘤が増大し、その破裂により脳内出血を発症した稀有な症例を経験したので報告する。症例は 73 歳、男性。解体作業中にトラックの荷台から転落して地面に倒れているところを発見され、救急搬送された。頭部 CT にて外傷性くも膜下出血、左急性硬膜下血腫、脳挫傷を認め、保存的加療を行った。発症 20 日目に左外傷性中硬膜動脈仮性動脈瘤破裂による左側頭葉脳内出血を認め、緊急血管内治療、開頭血腫除去術を行った。頭部外傷後のくも膜下出血の場合には、外傷性中硬膜動脈仮性動脈瘤発生の可能性を考え、経時的に CTA 及び脳血管撮影検査などによる評価を行い、外傷性中硬膜動脈仮性動脈瘤の存在に留意すべきと思われた。

「緒言」

外傷性仮性動脈瘤は頭蓋内脳動脈瘤の中でも稀であるが、外傷性中硬膜動脈仮性動脈瘤 (traumatic PMMA: pseudoaneurysm of middle meningeal artery) はさらに稀である。PMMA が破裂することによる頭蓋内出血は通常硬膜外血腫として発症することが多く、脳内出血により発症することは極めて稀である。我々は外傷性くも膜下出血、急性硬膜下血腫、脳挫傷に対する保存的加療中に PMMA が増大し、その破裂により脳内出血を発症した稀有な症例を経験したため報告する。

「症例」

73歳、男性。解体作業の仕事中にトラックの荷台から転落して地面に倒れているところを発見され、救急搬送された。意識消失は来していない。主訴は腰痛であり、来院時神経学的所見はJCS2、逆行性健忘を認めたが、明らかな神経学的異常所見は認めなかった。画像所見では、左骨盤骨折を認めた。頭部CTにて外傷性くも膜下出血、左急性硬膜下血腫、脳挫傷を認めた (Fig. 1) が、明らかな頭蓋骨骨折は認めなかった。引き続き行った頭部CTAでは頭蓋内血管に異常を認めず、入院にて保存的加療を行うこととした。骨盤骨折に関しても整形外科共観にて保存的加療の方針となった。入院後の頭部CTでは頭蓋内出血は減少しており、意識状態や神経所見の増悪は認めなかった。軽度注意障害が残存したため回復期病院に転院の方針としていた。しかし、発症20日目に突然の左側頭部痛と失語症状が出現し、頭部CTを行ったところ左側頭葉に新規脳内出血を認めた (Fig. 2: 上)。頭部MRAでは元画像も含めて明らかな血管異常は認めなかったが、さらなる脳血管精査が必要と判断し頭部CTA及び脳血管撮影検査を施行したところ、左中硬膜動脈前枝に動脈瘤を疑わせる所見を認めた (Fig. 2: 下)。血腫と動脈瘤に連続性が認められたため、PMMA破裂による脳内出血と判断し緊急動脈瘤塞栓術を行うこととした。手術は全身麻酔下に行い、ヘパリン3000単位を動脈注射した。6Fr guidingcatheter (Roadmaster; GOODMAN, Aichi, Japan)を左外頸動脈に、4Fr Cerulean (Medikit, Tokyo, Japan)を左中硬膜動脈起始部に誘導した。Marathon (Medtronic, Irvine, USA)を瘤内に誘導し、Barricade coil Complex Finish (Balt, Irvine, USA)を合計3本 (5mm×10cm, 3mm×6cm, 3mm×4cm)留置したところで、13%NBCA 0.2ccを瘤内に動注した (Fig. 3)。左中硬膜

動脈posterior convexity branchにNBCAの逆流を認めたため、Marathonを抜去した。Roadmasterからの確認造影にて瘤影は消失したため治療を終了した。ヘパリンリバー스는行なわなかった。術後に明らかな出血の増大はなく、顔面神経麻痺などの神経学的所見の増悪は認めなかった。血腫による脳幹圧迫は認めなかったため緊急での開頭手術は回避できたが、血腫の圧迫による意識障害遷延も危惧されたため、翌日待機的に左前頭側頭開頭による開頭血腫除去術を行った。左側頭葉硬膜上中硬膜動脈内にNBCAを認めた。血腫全摘出後に病変部を観察したところ、中硬膜動脈と脳実質の癒着部に血管内治療で用いたコイルおよびNBCAが確認できた(Fig. 4)。コイル周辺の硬膜、挫滅脳を一塊に摘出し病理検査に提出した。術後CTにて左側頭葉脳内出血は全摘出されており、術後出血は認めなかった。病理検査にて炎症細胞浸潤を伴う肉芽様凝血塊を認め、血管壁は破綻し、内膜、中膜、外膜が欠損していることから仮性動脈瘤と診断された(Fig. 5)。PMMA破裂から60日目にJCS3、感覚性失語が残存した状態(mRS2)で回復期病院に転院となった。

「考察」

中硬膜動脈仮性動脈瘤(PMMA)は全頭蓋内外傷性動脈瘤の27%を占め、全動脈瘤の1%以下¹と稀である。PMMA破裂は急性または遅発性に硬膜外血腫で発症することが多く、硬膜下血腫、くも膜下出血と関連することもある²が、脳内出血として発症することは極めて稀であり³、我々が渉猟し得た限り、過去に9例報告^{4~11}されている(Table. 1)。MMAを横切る側頭骨骨折が約70~90%で存在するとの報告があり^{1, 4, 12}、骨折を伴わない脳内出血で発症したPMMA症例は7例中2例で認められた。骨折を伴わない状況で発

生じたPMMAについて、Dong-Ho Limら⁵は血管壁牽引損傷を伴う閉鎖性頭部外傷により発症したものと考察し、Hollandら¹³は、頭蓋内MMAはmedial layerの欠損の存在が仮性動脈瘤の原因になっており、PMMAは必ずしも骨折線の近傍または下に位置するとは限らないと考察している。骨折を伴わない脳内出血で発症したPMMA症例において、Patriciaらの症例では頭部外傷の重症度の程度は記載されておらず、Dong-Ho Limらの症例でも重症度の詳細は不明であるが、交通事故による頭部外傷にて搬送されたとの記載であった。我々の症例も骨折を伴わない状況下にPMMAが生じていたが、骨盤骨折を伴う重症の転落事故による受傷であった。頭蓋骨骨折を伴わなくとも重症の高エネルギー外傷であった場合、PMMA発生の可能性があるものと思われ、骨折を伴わない症例においても頭部外傷後にはPMMAが発生することを念頭にフォローする必要があると考えた。PMMAはMMA損傷後に凝血塊により出血部位が止血され、その後の血腫融解によって偽腔を生じることで形成されると考えられている⁴。PMMAは破裂リスクが高く、致死率は50%と予後不良であり¹⁴、また破裂時期が1～30日後の早期であるため早期予防治療が必要である⁴。本症例においては、来院時にPMMAは存在していなかったが仮性動脈瘤破裂時（受傷20日目）にPMMAの存在を確認することができた。遅発性にPMMAが形成・破裂したと判断し、脳血管内治療による再破裂予防を行い、翌日に開頭血腫除去術を施行することで良好な経過が得られた。

画像検査に関してであるが、我々の症例においてPMMAは、それが破裂した時点で頭部CTA、脳血管撮影検査を行い初めて指摘することができた。一般的に頭部外傷後に遅発性に外傷性脳動脈瘤を生じる可能性があるため、頭部MRAやCTAによるフォローが有用と思われるが、PMMAは稀な病変

であるため、その発生について注意深く観察していないことが多いと思われた。Eva¹¹らは、PMMAの診断に頭部CTA、DSAを勧めており、同報告におけるCTA、DSA画像においてPMMAは明瞭に描出されていた。今回の症例においても頭部CTA、DSAは出血発症後に施行され、後方視的ではあるがPMMAを指摘できた。CTAでは外頸動脈系は画像処理の時点で省かれることが多いと思われるが、PMMA発生の可能性が疑われた場合には外頸動脈系も含めた精査が必要と考えられた。また、Jaeら¹⁵は中硬膜動脈に生じた外傷性仮性動脈瘤破裂が硬膜動静脈瘻を来し、脳実質内出血、外傷性くも膜下出血に至った症例を報告しており、この症例に関してもCTA及びDSAによる診断がなされていた。頭部外傷後の外傷性血管病変の精査においてCTA及びDSAによる検査が有用であると考えられる。

EvaらはPMMA形成の危険因子として骨折とその近傍の側頭部血腫の二つをあげ、それらが認められた症例に関しては神経所見の増悪がないか、及び頭部外傷から7～10日後にCTAを行いPMMAが形成されていないかを評価することを勧めている。我々の症例においては、頭蓋骨骨折は認めなかったが、搬送時の頭部CTにて側頭部の中硬膜動脈上と考えられる部位に少量の血腫が認められていた。骨折がない症例においても重症の高エネルギー外傷の症例においては受傷数日後にCTA、脳血管撮影検査を行うべきであると思われ、それによりPMMAの形成を出血発症前に指摘しうる可能性があると考えた。

過去の脳内出血発症のPMMA症例の治療方針であるが、開頭手術が9例中7例と多数を占め、2症例はIVR単独、及び両者を組み合わせた治療がなされていた。開頭手術が行われたものには2例の死亡例が含まれるが、開

頭手術とIVRが併用された症例はいずれも良好な経過であり、比較的予後が優れている可能性があると思われた。開頭手術単独で行った場合には頭蓋内圧は早期に減圧できるが、PMMAという稀な病変の対処に難渋する可能性があると思われた。血管内治療に関しては、直達手術と併用することで早期にPMMAの再破裂が予防できるため、時間的猶予がある場合には非常に有用と考えられた。我々の症例における術前画像検査にて、PMMAは比較的頭蓋底に近い脳実質内に入り込んだ部に位置すると考えられ、処置に関しては血管内治療を併用しない一般的な前頭側頭開頭での開頭手術にて十分に対応可能と思われた。しかしながら、PMMAは一般的に頻繁に遭遇する病変ではなく、誰が行ってもより安全に再破裂を予防しつつ救命を図ることが有益であると判断し、まずIVRによる止血を行った。その後血腫の圧迫による意識障害遷延も危惧されたため待機的に開頭血腫除去術を行った。IVRによる止血が得られていたため開頭手術の熟達者でなくとも安全に血腫除去を施行することができ、明らかな術後出血は認めず良好に経過した。脳ヘルニアを来すほどの血腫量でなければIVRと開頭手術の併用は有効であると思われた。

過去の報告において、脳内出血発症のPMMAの発症機序を考察した報告は認めなかった。本症例の画像所見によると、来院時頭部CTおよびCTAを行った時点で脳挫傷を認め、破裂時頭部CTA及び術中所見では左側頭葉に埋没するように仮性動脈瘤を確認することができた。破綻した中硬膜動脈の出血部位と脳挫傷部にて癒着及び凝血塊による止血が起り、その後の血腫融解によってPMMAが脳実質内に形成された可能性を考えた。

今回のようなPMMAは日常診療で遭遇することは稀であるが発生しうる事象である。頭部CT、CTA、DSAのフォローでその存在を指摘し、その破

裂を未然に防ぎ得ると思われる。頭蓋骨骨折を伴わない症例であってもある程度の高エネルギー外傷症例に関してはPMMAの発生を念頭に置いたフォローアップが必要と考えられた。

「まとめ」

我々は外傷性くも膜下出血、左急性硬膜下血腫、脳挫傷に対する保存的加療中に外傷性中硬膜動脈仮性動脈瘤が増大し、その破裂により脳内出血を発症した稀有な症例を経験した。稀な外頸動脈病変であるため、画像診断で発症を予見することは困難であるが、起こりうる可能性のある病態と認識し、頭部CT、CTA、および脳血管撮影検査を含めたフォローアップが必要と考えられた。外傷性中硬膜動脈仮性動脈瘤の破裂が認められた場合には再破裂の可能性が高く、速やかに脳血管の精査を行い診断後は早期治療の必要があり、直達手術、あるいはそれに血管内治療を組み合わせた治療が有効と思われた。

「利益相反開示」

筆頭著者及び共著者全員かに利益相反はない。

「文献」

1. Salazar Flores J, Vaquero J, Garcia Sola R et al. Traumatic false aneurysms of the middle meningeal artery. *Neurosurgery* 1986; 18: 200-203
2. Morard M, de Tribolet N. Traumatic aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery: case report. *Neurosurgery* 1991; 29: 438-441

3. Korosue K, Kondoh T, Ishikawa Y et al. Acute subdural hematoma associated with nontraumatic middle meningeal artery aneurysm: casereport. Neurosurgery 1988; 22: 411–413
4. Bruneau M, Gustin T, Zheknini K et al. Traumatic false aneurysm of the middle meningeal artery causing an intracerebral hemorrhage: case report and literature review. Surg Neurol 2002; 57: 174-178
5. Dong-Ho Lim, Tae-Sun Kim, Sung-Pil Joo et al. Intracerebral Hematoma Caused by Ruptured Traumatic Pseudoaneurysm of the Middle Meningeal Artery : A Case Report. J Korean Neurosurg Soc 2007; 42 : 416-418
6. Calvin L. Rambaugh, R. Thomas Bergeron, Theodore Kurze et al. Intracranial Vascular Damage Associated with Skull Fractures. Neuroradiology 1972; 104: 81-87
7. Patricia Bozzetto-Ambrosi, Gustavo Andre, Hildo Azevedo-Filho et al. Traumatic pseudoneurysm of the middle meningeal artery and cerebral intraparenchymal hematoma: case report. Surgical Neurology 2006; 66:29-32
8. Wellingson Silva Paiva, Almir Ferreira de Andrade, Robson Luis Amorim et al. Traumatic Pseudoaneurysm of the Middle Meningeal Artery Causing an Intracerebral Hemorrhage. Case Reports in Medicine 2010; 2010:219572

9. R Jinendra Kumar, Ponraj K Sundaram, Jaykumar D Gunjkar. Traumatic giant pseudoneurysm of the middle meningeal artery causing intracerebral hematoma. 2011; 59: 921-922

10. Xiaohua Wu, Yichao Jin, Xiaohua Zhang et al. Intraparenchymal Hematoma Caused by Rupture of the Traumatic Pseudoaneurysm of Middle Meningeal Artery. The Journal of Craniofacial Surgery 2014; 25: 111-113

11. Eva Montanari, Gabriele Polanara, Roberto Montalti et al. Delayed Intracerebral Hemorrhage After Pseudoaneurysm of Middle Meningeal Artery Rupture: Case Report, Literature Review, and Forensic Issues. World Neurosurg. 2018; 117:394-410

12. Kawaguchi T, Kawano T, Kaneko Y et al. Traumatic lesion of the bilateral middle meningeal arteries : case report. Neurol Med Chir (Tokyo) 2002; 42 : 221-223

13. Holland HW, Thomson JL. Aneurysm of the middle meningeal artery. Clin Radiol 1965; 16: 334-338

14. Holmes B, Harbaugh RE. Traumatic intracranial aneurysms: a contemporary review, Journal of Trauma 1993; 35: 855–860

15. Jae Won Park, Jong Young Lee. Traumatic intracerebral and subarachnoid hemorrhage due to a ruptured pseudoneurysm of middle meningeal artery accompanied by a medial sphenoid wing dural arteriovenous fistula, Korean J Neurotrauma 2017; 13:162-166

「画像」

Fig. 1

来院時頭部CT(上段): 外傷性くも膜下出血、急性硬膜下血腫、脳挫傷を認めた。

来院時頭部CTA(下段): 元画像を含めて明らかな動脈瘤は認めず。

Fig. 2

Day20 頭部CT: 左側頭葉に新規脳内出血を認めた。脳血管撮影検査: 左外頸動脈撮影にて左中硬膜動脈前枝に仮性動脈瘤を疑わせる所見を認めた。頭部CTA: 左側頭葉脳内出血と仮性動脈瘤との間に連続性が認められた。黒矢印: 仮性動脈瘤

Fig. 3

6Fr ガイディングカテーテルを左外頸動脈に誘導し、左中硬膜動脈起始部まで4Fr Ceruleanを誘導した。A. Marathonを瘤内に誘導し、Barricade coil Complex Finishを合計3本留置した。B. 13%NBCA(0.2cc)にて塞栓を行ったところ左中硬膜動脈posterior convexity branchにNBCAの逆流を認めた。Roadmasterからの確認造影にて瘤影は消失した。

Fig. 4

A. 左側頭葉硬膜上にNBCAによると思われる暗赤色の肥大した左中硬膜動脈（黒矢印）を認めた。 B. 硬膜をU字切開し翻転すると左中硬膜動脈（黒矢頭）は左側頭葉に埋没する状態となっていた。 C. 血腫全摘出後に病変部を観察したところ、中硬膜動脈と脳実質の癒着部に血管内治療で用いたコイルを含む仮性動脈瘤（白矢印）を疑わせる所見が確認された。

Fig. 5

EVG(Elastica van Gieson)染色にて破綻した血管壁、炎症細胞浸潤を伴う肉芽様凝血塊を認め、仮性動脈瘤と診断された。黒矢印：炎症細胞浸潤を伴う肉芽様凝血塊、白矢印：破綻した弾性板

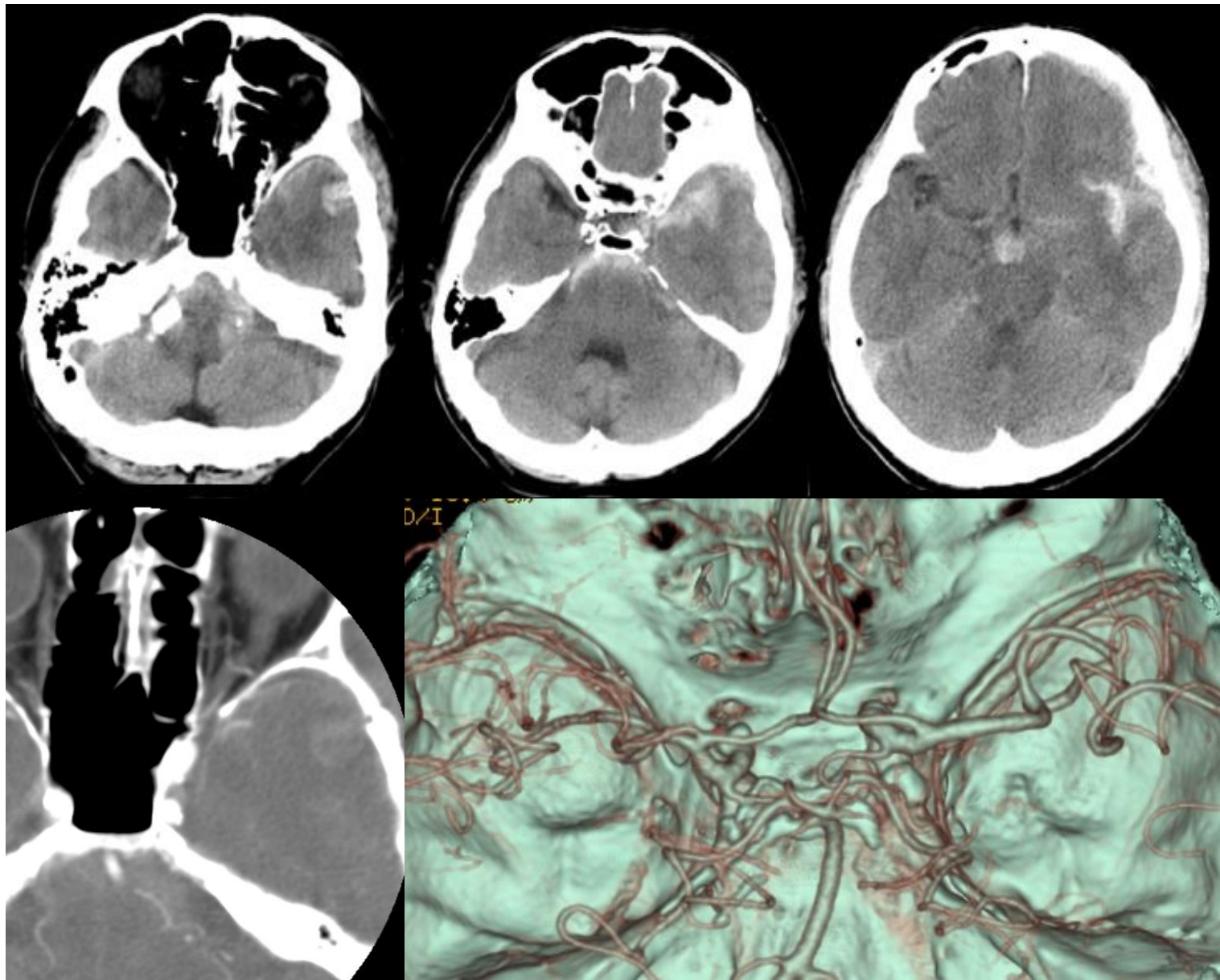


Fig.1

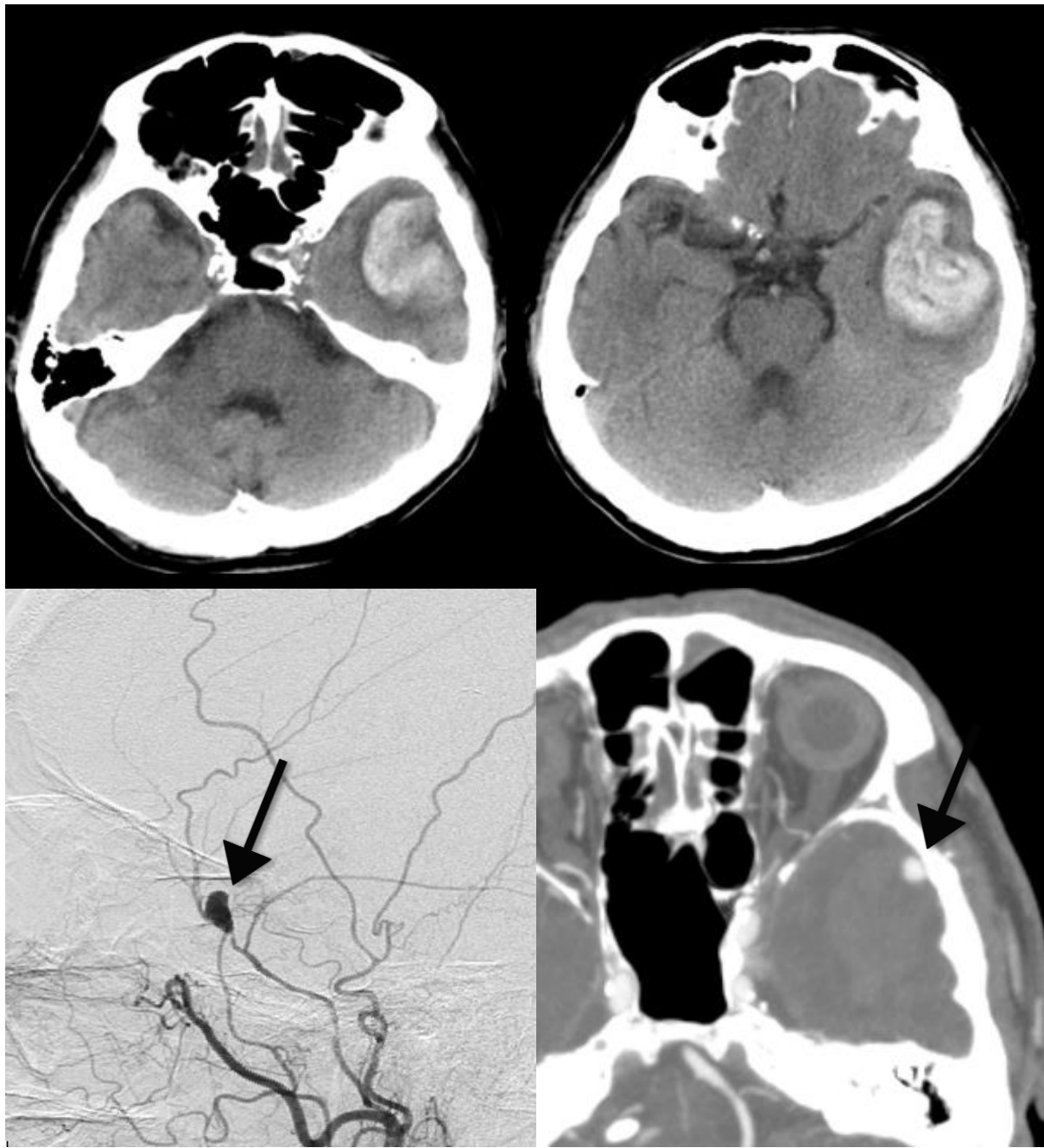


Fig.2

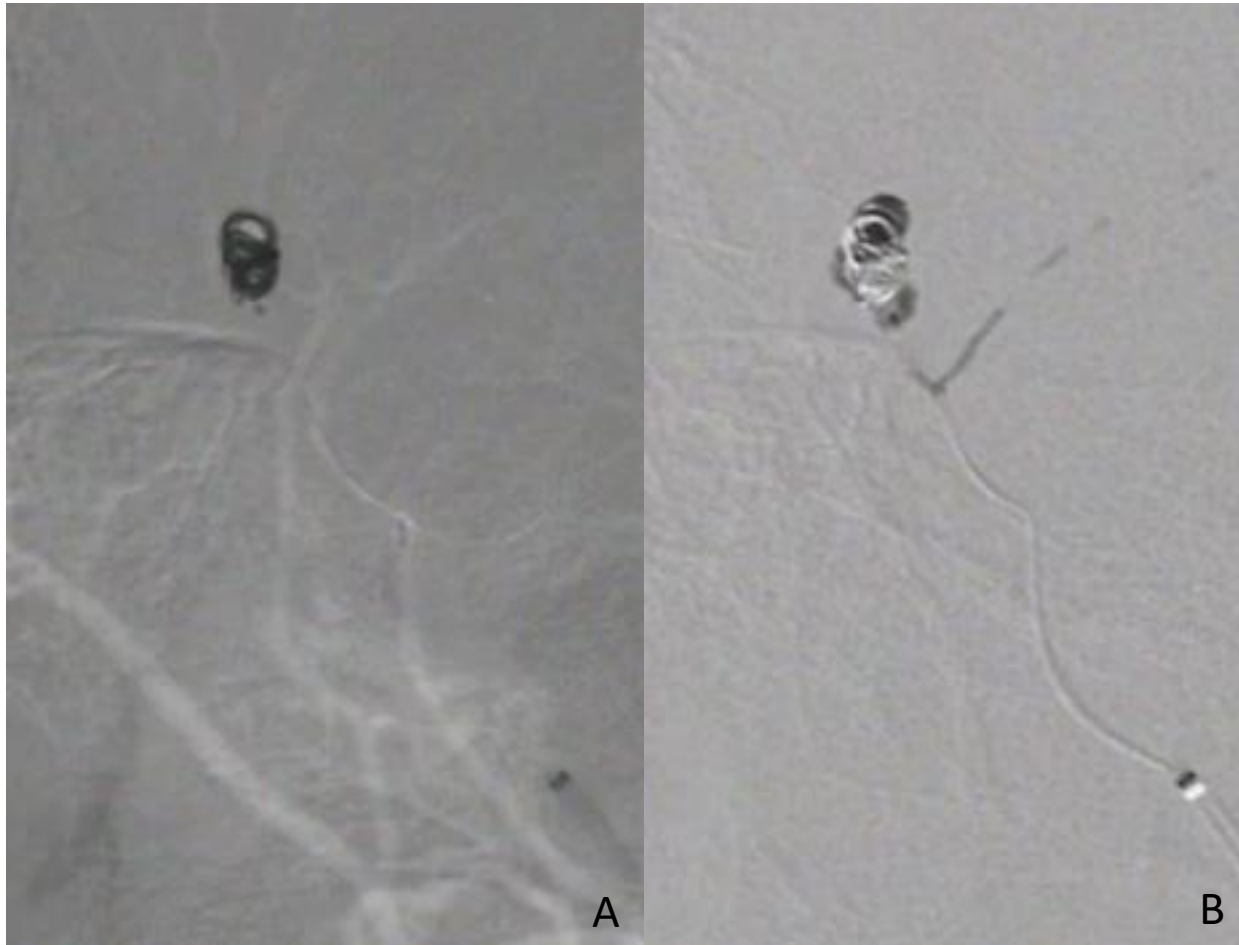


Fig.3

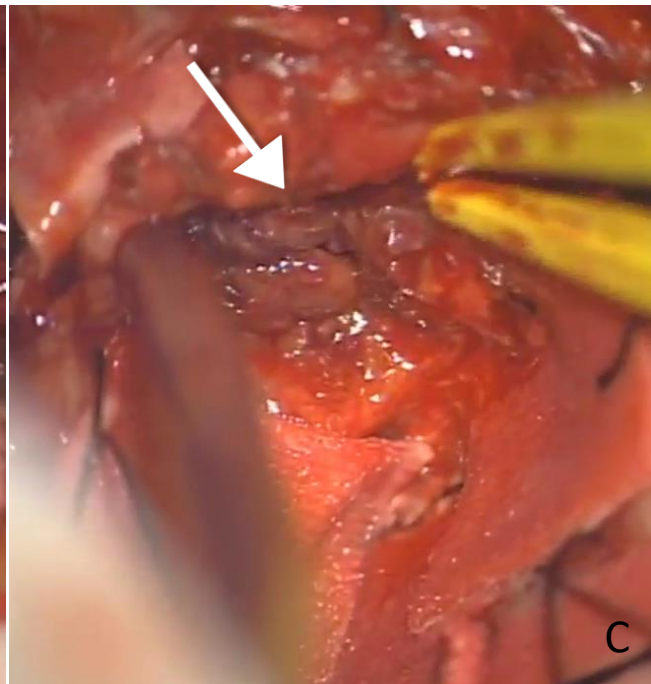
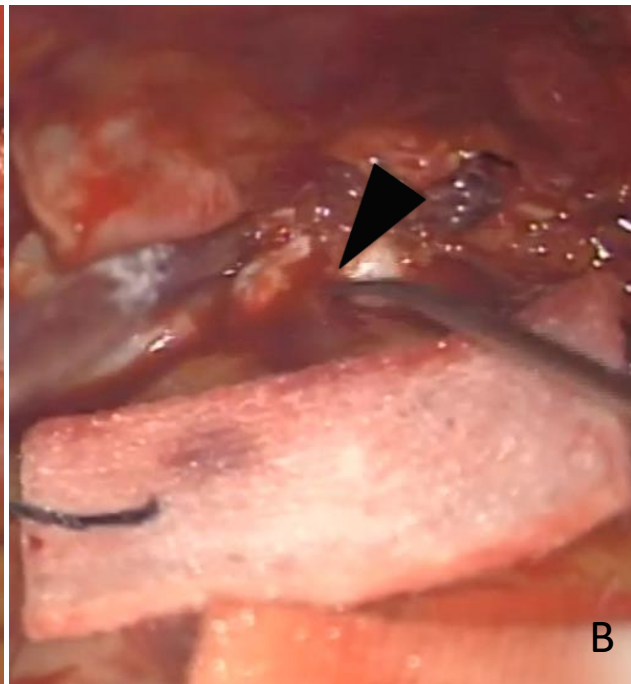
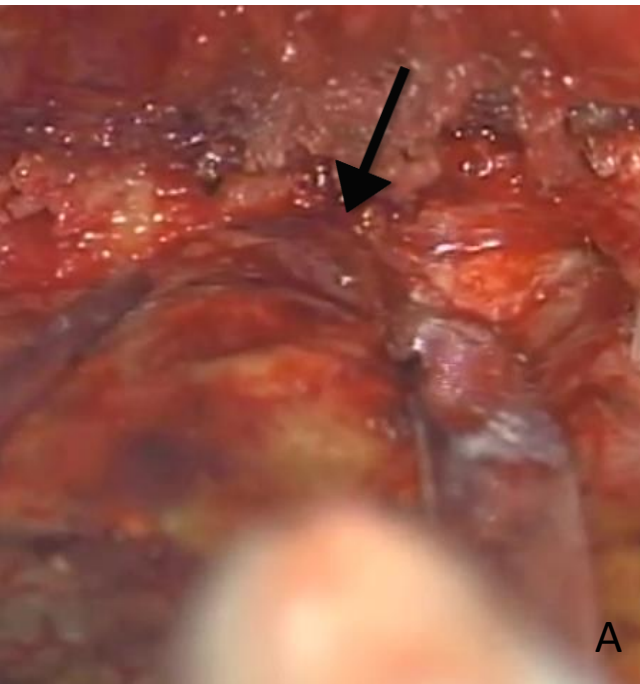


Fig.4

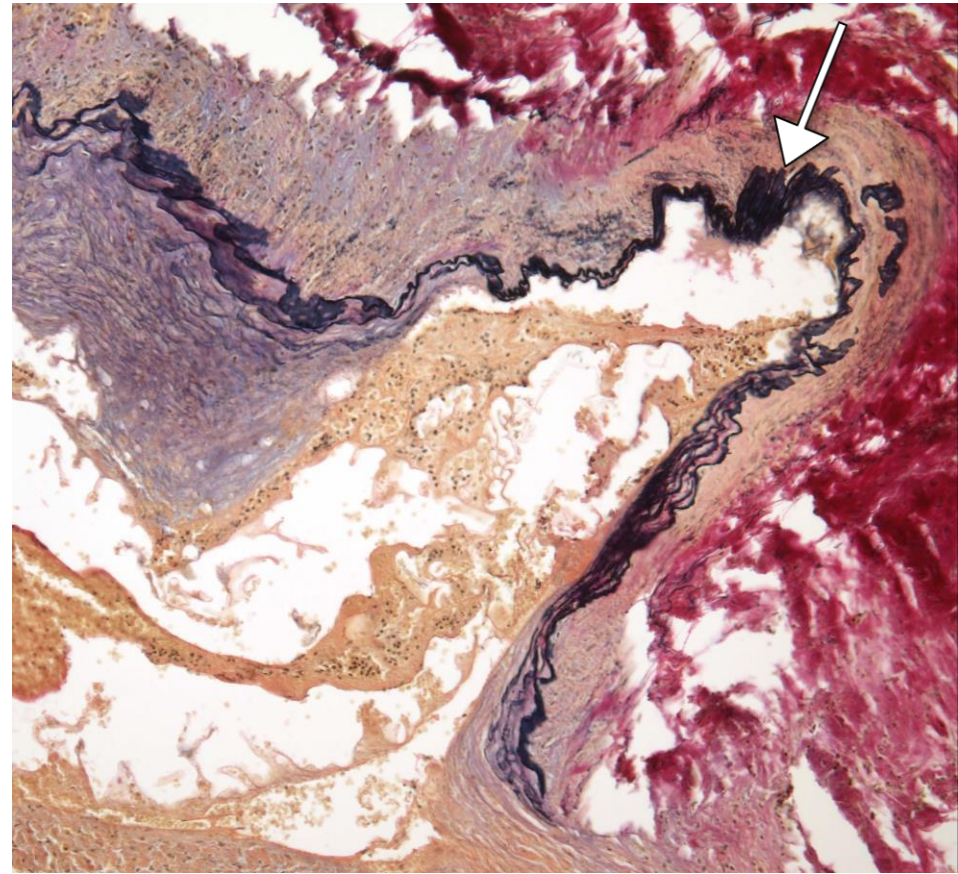
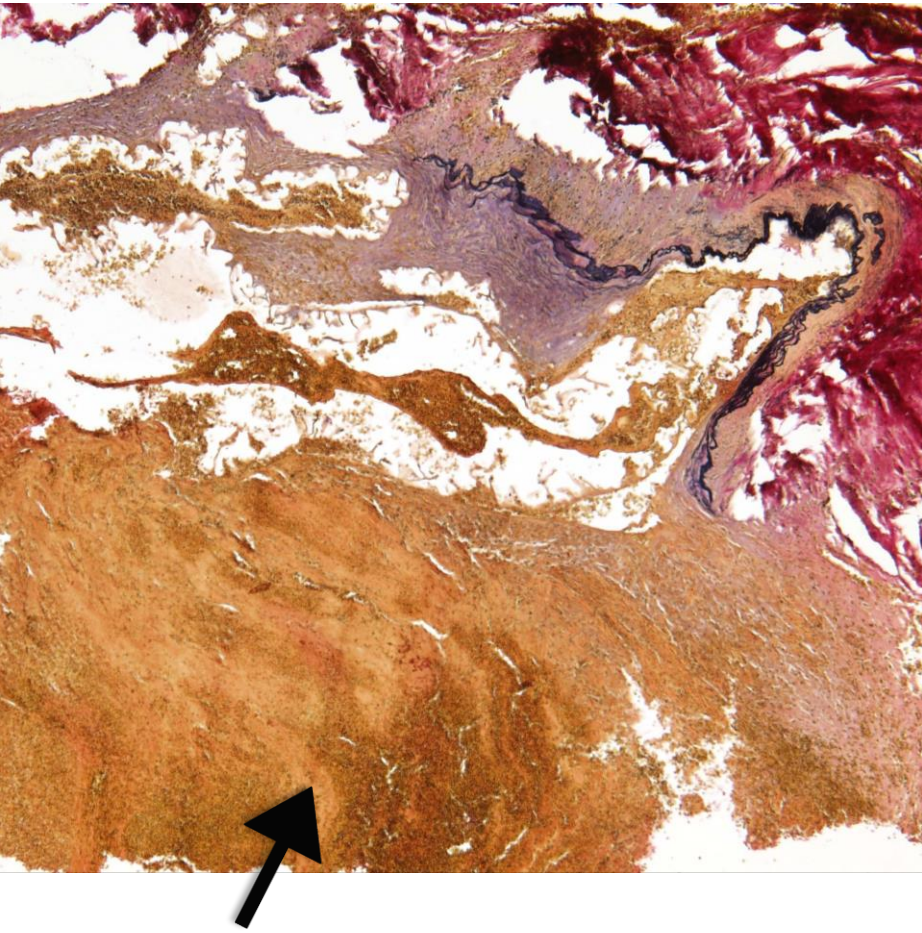


Fig.5

table1.過去の報告における脳内出血として発症した中硬膜動脈仮性動脈症例

case	報告者	年齢 性別	頭部打撲既往, 初診時及び破裂時の症状	初診時及び破裂時CT	骨折	治療方法	退院時 転機
1	Bruneau et al 4)	64 女	頭部打撲既往不明 意識障害(GCS3)にて搬送	搬送時 前頭側頭葉ICH 脳室内穿破	+	開頭手術	mRS6
2	Rambaugh et al 6)	63 女	記載なし	右側頭葉ICH	+	開頭手術	「good recovery」
3	Lim et al 5)	70 男	交通事故 頭部打撲既往あり、意識障害(GCS13)、片麻痺にて搬送	搬送時 右側頭葉ICH	-	開頭手術	「Day58 GCS14で退院」
4	Patricia et al 7)	39 男	頭部打撲既往不明、意識障害(GCS12)、片麻痺にて搬送	搬送時 右側頭葉ICH	-	開頭手術後にPMMAを指摘しIVR(NBCA)	「問題なく改善しDay5退院」
5	Wellingson et al 8)	33 男	自動車事故による頭部打撲で搬送 GCS13	搬送時 左側頭葉ICH	+	IVR(NBCA)のみ	「GCS15で退院」
6	Kumar et al 9)	53 男	アルコール飲酒による転落 →4日後様子がおかしい(GCS12)ため来院	搬送時 右側頭葉ICH	+	開頭手術	「数日後GCS14で退院」
7	Xiaohua et al 10)	49 男	自動車事故にて搬送 →14日後破裂時 嘔吐、頭痛	搬送時ASDH→14日後 側頭葉ICH	+	開頭手術	「良好な予後が得られDay25退院」
8	Xiaohua et al 10)	53 男	交通事故で搬送 GCS10	搬送時左前頭葉ICH	+	開頭手術	「良好な予後が得られ退院」
9	Eva et al 11)	66 男	階段3段目から転落し救急搬送 一過性意識消失+、意識障害(GCS12) →入院15日目右上下肢麻痺、意識障害	搬送時左側頭部に少量出血、外傷性くも膜下出血 →入院15日目左側頭葉ICH	+	開頭手術	mRS6
10	our case	73 男	転落事故にて搬送 健忘→20日後 頭痛、失語	搬送時ASDH,tSAH→20日後 左側頭葉ICH	-	IVR(coil+NBCA)後に開頭手術	Day60 mRS2で回復期病院に転院