

1) 症例報告

2) 頭蓋外起始型後下小脳動脈を伴った破裂解離性動脈瘤のコイル塞栓術後に重篤な虚血性合併症を生じた 1 例

3) 稲葉真貴¹⁾, 師井淳太¹⁾, 田中美千裕²⁾

4)

1) 秋田県立脳血管研究センター 脳神経外科

2) 亀田総合病院 脳神経外科

5) 亀田総合病院 脳神経外科

〒296-8602 千葉県鴨川市東町 9 2 9 番地 090-6197-7558

dandy25@hotmail.co.jp

6) case presentation

A case of severe cerebral ischemia after coil embolization hemorrhagic vertebral artery dissecting aneurysm with PICA originated from V3 segment.

Maki INABA¹⁾, Junta MOROI¹⁾, Michihiro TANAKA²⁾

1) Department of Neurosurgery, Research Institute for Brain and Blood Vessels-Akita

2) Department of Neurosurgery, Kamada medical center

Kamada medical center Department of Neurosurgery 929 Higashi-cho
Kamogawa City Chiba 29608602 JAPAN

7) extradural origin PICA, dissecting aneurysm, vertebral artery

8) 本論文を,日本脳神経血管内治療学会 機関紙「脳血管内治療」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.

【緒言】 解離性椎骨動脈瘤の治療の際に PICA の分岐位置により治療戦略が異なることはよく知られているが頭蓋外起始型 PICA 症例の解離性椎骨動脈瘤に関する報告はない．【症例】 49 歳,男性, 入浴中下肢の脱力を訴え家族に救急要請を依頼した．入院時 JCS10, GCS13(E3V4M6)の意識障害を認め神経学的所見は両下肢 MMT2/5 であった．WFNS3 のくも膜下出血で椎骨動脈 V4 portion に紡錘型の破裂解離性動脈瘤を認め PICA は頭蓋外起始型であった．同日コイルを用いた母血管閉塞を施行した．術翌日の MRI では延髄外側,小脳半球中心に梗塞所見を認めた．術後 spasm 期は症状なく経過し慢性期リハビリテーションに mRS4 で転床した．【結論】 破裂解離性椎骨動脈瘤の治療では PICA,前脊髄動脈の位置が問題になる．本例のように PICA が頭蓋外起始の場合,主たる頭蓋内 PICA 灌流域はより小さな branch, perforators が担うため,それらの閉塞にて重篤な虚血性合併症を生じる．

Objective: Treatment for ruptured dissecting aneurysms of the vertebral artery (VA) varies according to the origin of the Posterior inferior cerebellar artery (PICA). However a PICA originating from the V3 segment has not been reported.

Case presentation: A 49 year-old man with a WFNS grade III subarachnoid hemorrhage developed headache and bilateral lower limb weakness. Computed tomographic angiography revealed a right hemorrhagic dissecting aneurysm of the VA at the V4 segment, with a PICA originating from the V3 segment. On the day after endovascular coil embolization of the parent artery MRI identified ischemic complications of the lateral medullary, ipsilateral cerebellar

hemisphere. He had no other complications and was transferred to a rehabilitation hospital with mRS4.

Conclusion: Considering the origins of the PICA and ASA is important when selecting treatment for hemorrhagic vertebral artery dissecting aneurysm. The morphological features of aneurysms such as that described herein are challenging, and perforated vessels might become occluded and initiate ischemic complications.

緒言：後下小脳動脈（Posterior inferior cerebellar artery; PICA）は非常に variation に富む血管であることが知られており，頭蓋外起始型 PICA も珍しいものではない．解離性椎骨動脈瘤の治療の際に PICA の分岐の位置により治療戦略が異なることはよく知られているが，頭蓋外起始型 PICA 症例の解離性椎骨動脈瘤に関する報告はない．今回我々は，クモ膜下出血で発症した頭蓋外起始型 PICA を有する解離性椎骨動脈瘤の一例を経験し PICA 灌流域について過小評価した結果広範な虚血性合併症につながったためこの問題点に関する文献的考察を加えて報告する．

症例提示：49 歳 男性

既往歴：高血圧, アトピー性皮膚炎

現病歴：入浴中下肢の脱力を訴え家族に救急要請を依頼した．近医画像上クモ膜下出血の診断で当院搬送となった．

入院時身体所見：Japan Coma Scale=10, Glasgow Coma Scale=13 (E3V4M6), の意識障害を認め，項部硬直 4 横指が存在した．神経学的所見は両下肢 Manual Muscle Testing 2/5 を認めた．

入院時画像所見：頭部 CT では脳底槽を中心にびまん性にクモ膜下出血を認めた (Fig1A,B). World Federation of Neurosurgical Societies=grade III, Hunt & Kosnik², Fisher group² の診断となった. 3D-CTA では右椎骨動脈 V4 portion に最大径 5.6mm の紡錘型動脈瘤を認め, 瘤から 2 本の branch を認めていた (Fig1C,D). 明らかな前下小脳動脈 (Anterior inferior cerebellar artery: AICA) は存在しなかった. 脳血管撮影では左椎骨動脈の径が右椎骨動脈より太く, PICA は両側頭蓋外から起始していた (Fig2A,B).

治療経過：脳血管撮影の結果, 破裂解離性椎骨動脈瘤の診断となった. 脳血管撮影所見では左椎骨動脈の径が右椎骨動脈より太く発達しており, また PICA は頭蓋外起始であり解離との距離は十分に離れていた. 明らかな AICA が存在しないため瘤から直接分枝する血管が AICA 領域を灌流している可能性は否定できなかったがクモ膜下出血症例でもあり確実な止血を図るべく母血管閉塞の方針とした (Fig2C). バイパス術に関しては龍から直接分枝する血管への吻合は困難であること, ステント使用は止血が不完全になることをそれぞれ危惧し選択しなかった.

手術所見：全身麻酔下に右大腿動脈には 6Fr long sheath, 左大腿動脈には 4Fr long sheath を挿入した. 左椎骨動脈への診断カテーテル用に左大腿動脈に 4Fr long sheath を挿入した. 右大腿動脈から 6Fr Guiding Catheter (Lancher 90cm STR) を 4Fr CX catheter, 0.035 inch radifocus guide wire を co-axial に組み右椎骨動脈へ留置した. Microguidewire (Silverspeed 0.014inch 200cm), microguide catheter (SL10 45° preshaped) を用いて解離遠位部に誘導したが解離遠位部には狭窄があり canulation はやや難渋した (Fig2D). 解離遠位部より Target 360 soft 3mm

×8cm を留置した．一部 kick back により解離腔内にコイルが滑落したがそのまま detach し計 9 本のコイルを解離腔から詰め戻り解離近位側 5mm まで塞栓した (Fig2E)．最終血管造影では右椎骨動脈からの順行性の血流は途絶しており塞栓部から PICA の間の血流は鬱滞していた (Fig3A, B)．左椎骨動脈撮影では右椎骨動脈解離遠位部で血流は途絶し盲端の血流は鬱滞しており解離の閉塞を確認して終了した (Fig3C, D)．術中は全血凝固時間 (activating clotting time: ACT) をコントロール値の 2 倍に延長するようにヘパリンを投与し帰室時ヘパリンは natural reverse とし全身麻酔, 挿管管理下に集中治療室入室とした．

術後経過：術後 1 日目, 鎮静解除後 MRI DWI では右延髄外側, 右小脳半球を中心に広範な梗塞が出現した．梗塞は一部左小脳半球辺縁にも存在した (Fig4)．このとき JCS30, GCS E2VTM4, 四肢は脳圧亢進によると考えられた MMT2/5 程度の両側四肢麻痺があり緊急脳室ドレナージ術を施行した．術後 3 日目には JCS3, GCS E4VTM6, 四肢麻痺について MMT3/5 程度に改善し指示が入るようになったため抜管 try したものの喀痰排出が困難であり呼吸困難に陥ったため再挿管, 術後 6 日目に気管切開を施行した．Spasm 期は新たな神経脱落症状なく経過し, 四肢麻痺も MMT4/5 程度まで改善してきたが覚醒改善と共に嚥下障害, 小脳症状などが顕在化してきた．第 55 病日に慢性期リハビリテーションに mRS4 で転床した．この時点で JCS3, GCS E4VTM6, 四肢は近位筋優位の麻痺で MMT4/5 程度の評価, 遠位筋については MMT5/5 の評価であった．右顔面, 左上下肢温痛覚障害, 嚥下困難, 歩行訓練時の動揺, めまいは後遺したが気管切開下に発声練習中であった．主たるコミュニケーションは PC を用いて可能であった．聴覚障害についてはその後, リハビリ病棟でイヤホン装着した時に右耳の聴力低下

が明らかになり ABR 施行したところ 3-5 波の潜時延長を認めていることが明らかになった. 抗血小板療法は術後 1 日目より cilostazol 200mg を開始している.

考察: 出血性解離性椎骨動脈瘤の治療方針について, 脳卒中ガイドライン 2015 では再出血率は 14-69%と高いため再出血予防の外科的治療, 血管内治療が考慮されるが近年血管内治療が第一選択となる傾向にある. 一般にこの部位の治療では VA から PICA の分岐位置を pre PICA, PICA involved type, post PICA, non PICA type に分けて治療法を選択することとされている. Pre PICA, non PICA type では解離部を含めて VA を閉塞する. 患側 PICA は逆行性に温存される. Post PICA type では解離から PICA の間で VA を閉塞する. 困難な場合は PICA involved type, post PICA type で PICA の分岐部と解離が近い場合である. 患側 PICA 領域にバイパス術を施行するか, 患側 PICA が優位でないと判断できる場合 PICA 側副血行に期待して PICA ごと解離部を閉塞するという選択もある. また虚血耐性がない場合ステントも考慮されうるものの本邦では頭蓋内留置ステントは未承認である. 諸家の報告にステント使用による穿通枝領域温存の例も散見されるが, 一方で再出血の報告もあり一定した見解の得られていない治療ともいえる¹⁾²⁾³⁾⁴⁾⁵⁾⁶⁾⁷⁾⁸⁾.

治療方針の決定に重要な PICA の起始部は variation に富むことが知られており頭蓋外起始型後下小脳動脈 (extradural origin PICA) も決して珍しいものではなく 5-20%程度と報告されている⁹⁾¹⁰⁾¹¹⁾¹²⁾¹³⁾. 頭蓋内起始型 PICA についてはよく研究されており duplicate PICA, aplastic 等記述も多いが extradural origin PICA については症例報告が散見され

るのみで穿通枝梗塞に言及性したものはない。Lister らによると PICA は anterior medullary segment, lateral medullary segment, tonsilomedullary segment, telovelotonsillar segment, cortical segment の 5 つの segment に分類される。この分類はテント上の動脈についての分類と異なり, 解剖学的位置, 彎曲によってなされているので extradural origin PICA に用いる場合便宜的となるが分枝, 灌流域の推定に簡便なので用いていく。Anterior medullary segment は VA から分枝し延髄前下縁から第 12 神経の神経根を通り延髄外側の inferior olive に至り, lateral medullary segment は延髄外側 inferior olive から後方に向かい第 9, 10, 11 脳神経の root までの範囲, tonsilomedullary segment は延髄後縁の第 9, 10, 11 脳神経後方で急に上方に向きをかえ第 4 脳室後壁に沿って上行して小脳扁桃上極に達する。その後 Telovelomedullary segment は小脳扁桃内側を第 4 脳室上縁に向かい vermis, tonsil, 皮質に分枝するところまで, cortical segment は皮質にそれぞれ分枝し末梢に至る範囲となる¹⁴⁾¹⁵⁾。

Extradural origin PICA では頭蓋外から後頭蓋窩内に入り込むため tonsilomedullary segment 相当部位から延髄背側を周り虫部, 小脳半球下部を灌流することになる。このため anterior medullary segment, lateral medullary segment に相当する灌流領域は他の動脈, 多くは椎骨動脈から起始することになる。一般に AICA の発達が良好であれば AICA から PICA への灌流も期待できるが AICA が分枝しない場合は全て椎骨動脈分枝からの灌流が主となることが予想される。脳幹への分枝は Rhoton らのグループによると PICA の anterior medullary segment, lateral medullary segment, tonsilomedullary segment までに分枝するといわ

れている．もっとも数多い穿通枝が分枝するのが tonsilomedullary segment で主にこの segment の前半からの分枝が相互に複雑な network を形成している．Akar らはさらに詳細に主な脳幹への perforators は lateral medullary segment, tonsilomedullary segment 前半から分枝することを cadaver の結果より明らかにしている．また Akar らによる同じ報告で 11 症例の cadaver dissection から検討した結果, 延髄への灌流動脈は椎骨動脈, 前脊髄動脈, AICA, PICA から成る．うち延髄腹側 pyramid, olive に注目してこれらへの分枝をそれぞれ分類している．これによると pyramid への灌流は多くが前脊髄動脈から, inferior olive は PICA 灌流領域になる．この PICA 灌流領域は lateral medullary segment からの分枝が担う¹⁵⁾¹⁶⁾¹⁷⁾．

これら cadaver dissection からの結果と, 本例の梗塞所見を考察すると本例の椎骨動脈解離部から分枝していた血管は PICA の lateral medullary segment 相当領域を灌流していたことが推察され, また AICA が存在しなかったためこの分枝が AICA 灌流域をも担っていたと考えられる．通常 VA, AICA, PICA が複雑な network を形成しているため後頭蓋窩では比較的重症な梗塞は発症しにくいと言われている．しかし本例ではこの network 構築に関わる VA, AICA, PICA 全ての灌流が消失した状態と考えられる．このため lateral medullary segment 相当域, AICA 灌流域と考えられる小脳皮質と広範な領域の梗塞が生じたと考えられる．

本例では入院時主訴が両下肢脱力という今回の右出血性解離性椎骨動脈瘤のみでは説明できない症状をきたしていた．この点に関しては比較的若年者のクモ膜下出血であり頭蓋内圧亢進が原因であったと推測される．術後頭蓋内圧亢進が原因と考えられる意識障害遷延を認めたため脳室ド

レナーゼ術を施行し緩徐に症状が改善している。

今回抗凝固療法, 抗血小板療法について, 術中ヘパリンは natural reverse, 翌日から抗血小板薬として cilostazol 開始としている。出血性解離性椎骨動脈瘤の術後抗凝固療法, 抗血小板療法について統一された見解は存在しないものの, 報告例によると術後抗血小板薬内服を開始することが多いようである。術直後からの加療に関しては杉生らがルーチンにヘパリン漸減, オザグレルナトリウム使用していると報告しているが良好な結果を得られている。²⁾³⁾⁸⁾¹⁸⁾¹⁹⁾

本例は頭蓋外起始型 PICA を持つ椎骨動脈の medullary perforator を巻き込む形の出血性解離性椎骨動脈瘤であった。治療に関しては, ①PICA は頭蓋外起始であり十分に解離腔から離れている, ②左椎骨動脈の描出は良好であり優位側とも考えられた, ③ステント併用では破裂瘤の完全な止血に疑問が残ったことなどよりコイルを用いた母血管閉塞を選択した。①に関しては後から考察すると誤りでむしろ PICA involved type と考えるべきであった。その結果, 重篤な脳梗塞をきたしたが瘤の再破裂予防には成功できたといえる。

結論: 1) 頭蓋外起始型 PICA の PAO 後に虚血性合併症を生じた一例を経験した。2) 硬膜外起始型 PICA の灌流領域が広範であると期待し瘤から分枝する perforators も含めた母血管閉塞を施行したところ予想以上に広範な梗塞巣が出現した。3) 頭蓋外起始型 PICA を伴う解離性椎骨動脈瘤治療では硬膜内 PICA 灌流域に留意し治療法を吟味, 戦略を立てる必要がある。

「筆頭著者及び共著者全員が利益相反はない」

文献

- 1) Mizutani T, Aruga T, Kirino T, et al. Recurrent subarachnoid hemorrhage from untreated ruptured vertebrobasilar dissecting aneurysms. *Neurosurgery* 1995; 36: 905-913.
- 2) 杉生憲治, 徳永浩司, 渡邊恭一, 他. 破裂解離性椎骨動脈瘤に対する血管内治療. *脳卒中の外科* 2005; 33:200-205.
- 3) 杉生憲治, 徳永浩司, 伊達勲. 破裂急性期椎骨動脈解離性動脈瘤に対する血管内治療. *脳神経外科* 2004; 32: 1229-1238.
- 4) 吉田健作, 大石英則, 山本宗孝, 他. 出血性解離性椎骨動脈瘤に対してステントのみ留置した1例. *JNET* 2015; 9: 103-107.
- 5) Narata AP, Yilmaz H, Schaller K, et al. Flow-Diverting stent for ruptured intracranial dissecting aneurysm of vertebral artery. *Neurosurgery* 2012; 70: 982-989.
- 6) Zenteno MA, Santos-Franco JA, Freitas-Modenesi JM, et al. Use of the sole stenting technique for the management of aneurysms in the posterior circulation in a prospective series of 20 patients. *J. Neurosurg* 2008; 108: 1104-1118.
- 7) 中川亨, 片山正輝, 村上秀樹. 血管内治療による proximal occlusion 後,再開通し増大傾向を示した PICA-involved type の椎骨動脈瘤の1例. *脳卒中の外科* 2009; 37: 461-465.
- 8) 宮本直子, 内藤功, 高玉真, 他. 破裂解離性椎骨動脈瘤に対する Enterprise VRD を用いた瘤内塞栓術. *脳卒中の外科* 2013; 41: 253-258.
- 9) Fine AD, Cardoso AC, Rhoton AL Jr. Microsurgical anatomy of

the extracranial-extradural origin of the posterior inferior cerebellar artery. *J Neurosurg* 1999; 91: 645-652.

1 0) Eduardo S, Ibrahim Z, William B, et al. Extradural origin of the posteriorinferior cerebellar artery: An anatomic study with histological and radiographic correlation. *Neurosurgery* 1998; 42(6) 1326-1331.

1 1) Chen CJ, Chen ST. Extracranial distal aneurysm of posterior inferior cerebellar artery. *Neuroradiology* 1997; 39: 344-347.

1 2) Tabatabai SAF, Zadeh MZ, Meybodi AT, et al. Extracranial aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery with an aberrant origination. *Neurosurgery* 2007; 61(5) E1097-E1098.

1 3) Tanaka A, Kimura M, Yoshinaga S, et al. Extracranial aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery. *Neurosurgery* 1993; 33(4) 742-744.

1 4) Lister JR, Rhoton AL, Matsushima T, et al. Microsurgical Anatomy of the Posterior Inferior Cerebellar Artery. *Neurosurgery* 1982; 2: 170-199.

1 5) Rodriguez-Hernandez A, Rhoton AL Jr, Lawton MT. Segmental anatomy of cerebellar arteries: a proposed nomenclature. *J Neurosurg* 2011; 115:387-397.

1 6) Akar ZC, Dujovny M, Gomez-Tortosa E, et al. Microsurgical anatomy of the anterior surface of the medulla oblongata and olive. *J Neurosurg* 1995; 82:97-104.

1 7) Lasjaunias P, Vallee B, Person H, et al. The lateral spinal

artery of the upper cervical spinal cord. *J Neurosurg* 1985; 63:235-241.

18) Yamada NK, Cross DT, Pilgram TK, et al. Effect of antiplatelet therapy on thromboembolic complications of elective coil embolization of cerebral aneurysms. *AJNR* 2007; 28:1778-1782.

19) Halbach VV, Randall T, Higashida, et al. Endovascular treatment of vertebral artery dissections and pseudoaneurysms. *J Neurosurg* 1993; 79: 183-191.

Fig. 1

A, B: Axial unenhanced CT shows diffuse thick subarachnoid hemorrhage.

C: CTA shows rather dominant left vertebral artery.

D: A three-dimensional angiogram of the right vertebral artery. Dissecting aneurysm with 2 perforators (arrow), originating from the wall of the aneurysm.

Fig. 2

A, B: Angiogram with bone of skull shows extracranial origin PICA(arrow).

C: Angiogram (anteroposterior view) of the right vertebral artery shows dissecting aneurysm with irregular wall and perforators which runs off cerebellar hemisphere. There is no anterior inferior cerebellar artery.

D: An intraoperative image shows the tips of a microcatheter (arrow) in the dissecting aneurysm.

E: Angiogram after coil embolization revealed obliteration of the aneurysm, and just proximal part of the right vertebral artery.

Fig. 3

A: Right vertebral angiogram after parent artery occlusion (anteroposterior view). No aneurysmal sac was shown on right vertebral angiogram.

B: Right vertebral angiogram after parent artery occlusion (lateral view).

C: Left vertebral angiogram after parent artery occlusion (anteroposterior view). No aneurysmal sac was shown on left vertebral angiogram. Contrast medium was stagnated distal to the aneurysm, and no contrast was seen right lateral cerebellar hemisphere.

D: Left vertebral angiogram after parent artery occlusion (lateral view).

Fig. 4

A Diffusion-weighted MR image reveals some high-intensity lesion mainly on the inferior olivary nucleus, lateral medulla, lateral pons, middle cerebellar peduncle on the right side, inferior cerebellar hemisphere on both side.

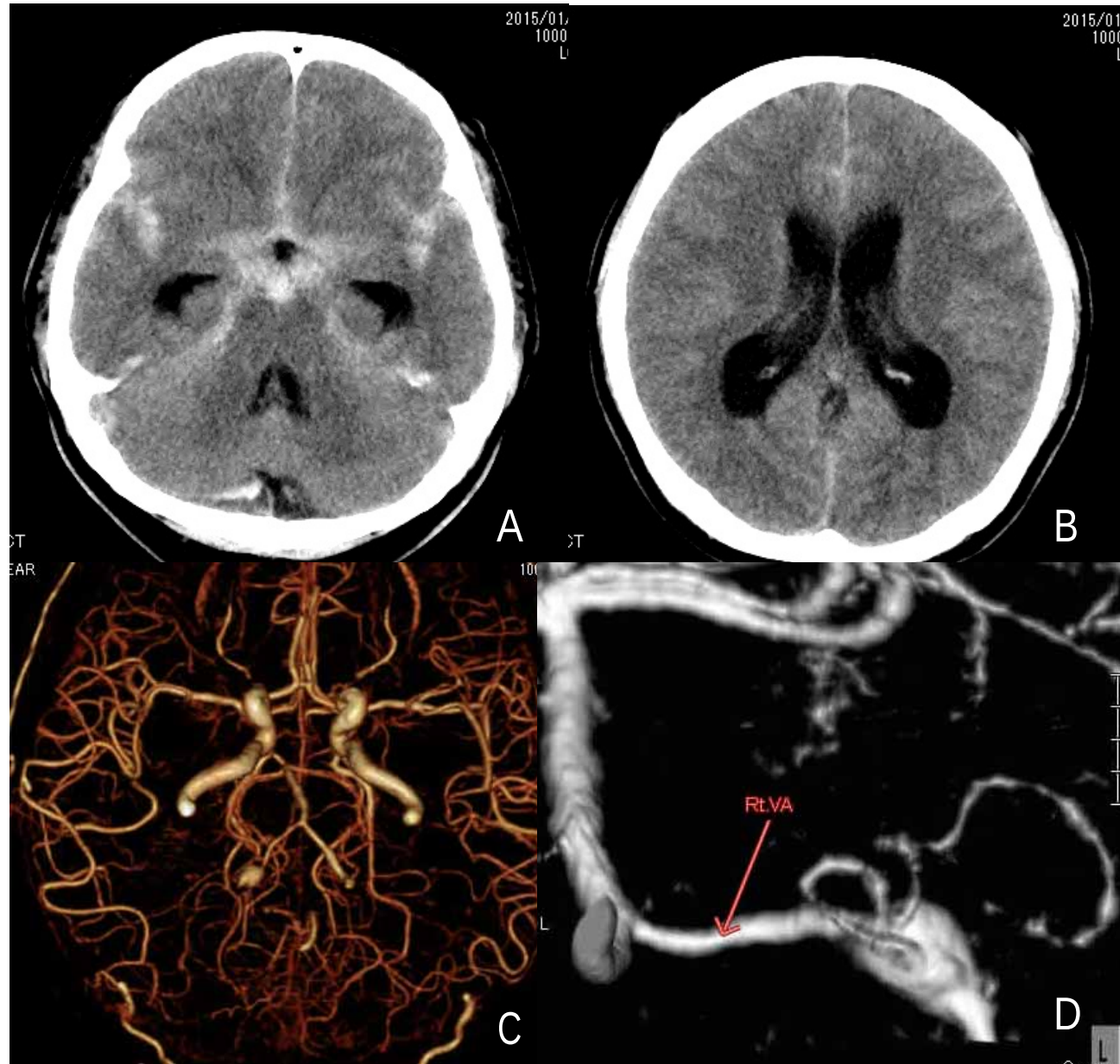
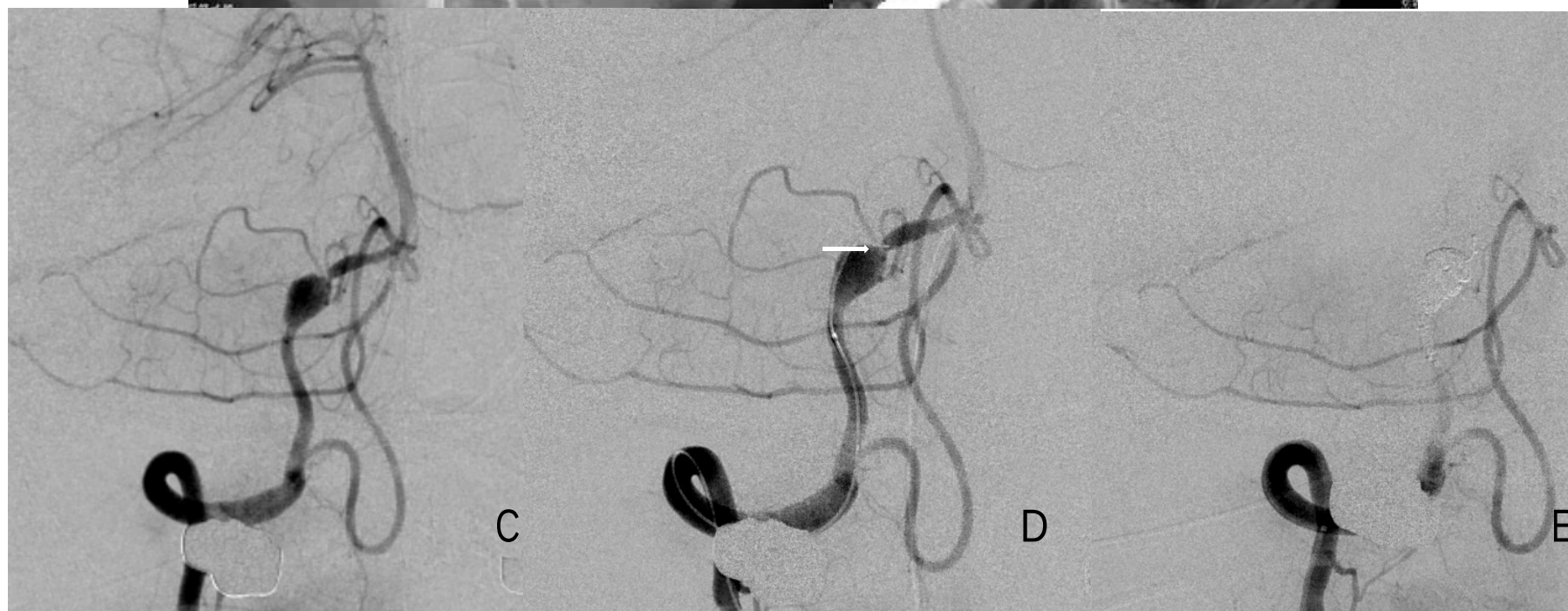
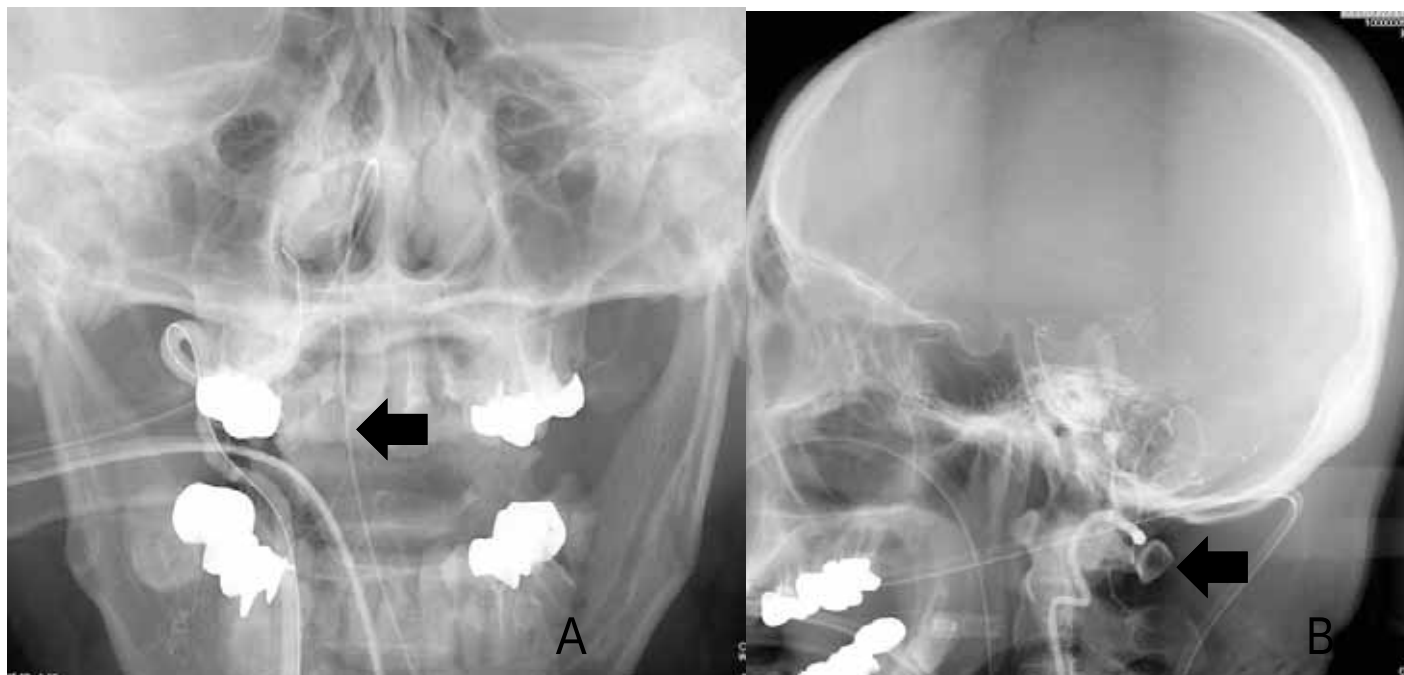


Fig1

Fig2



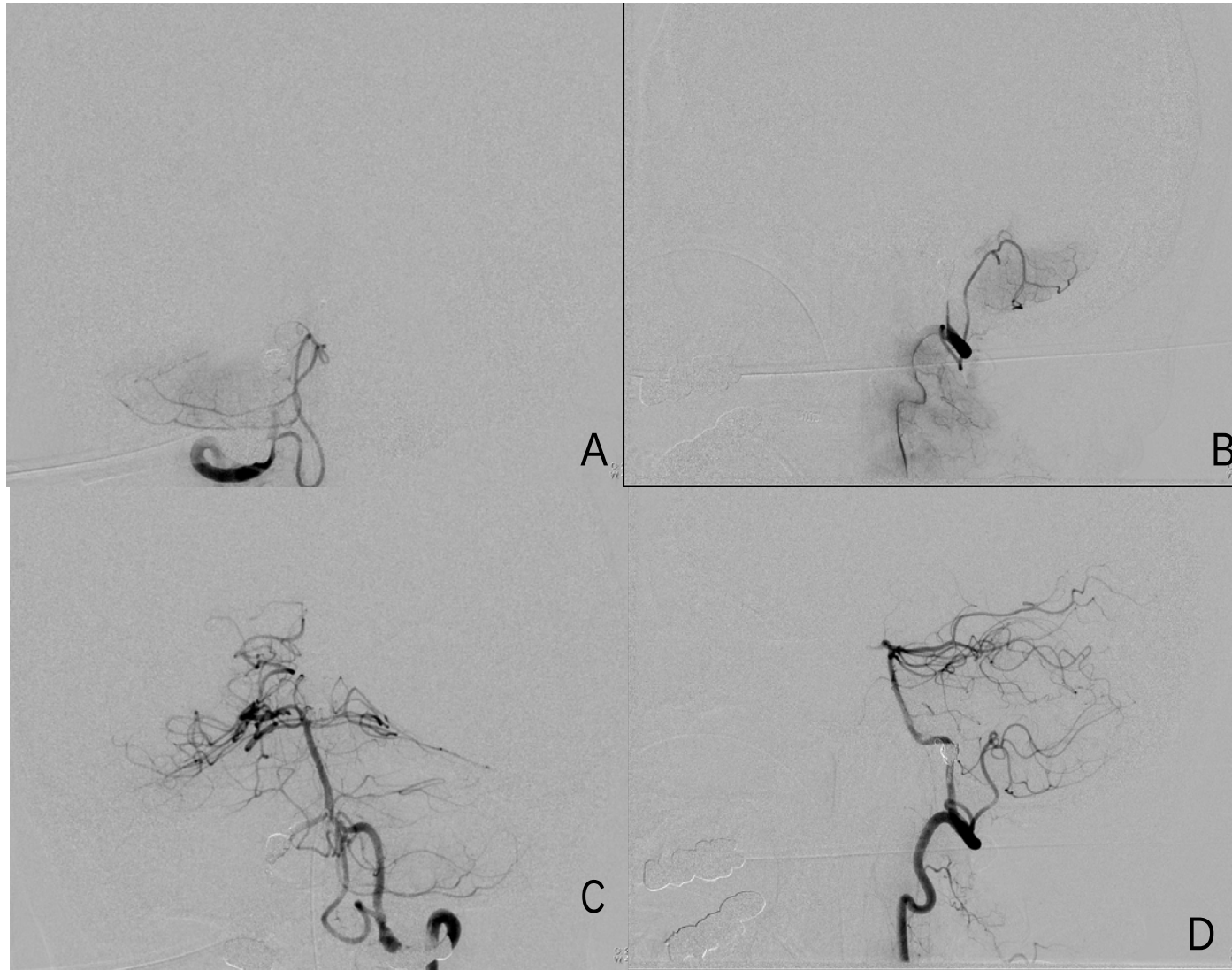


Fig3

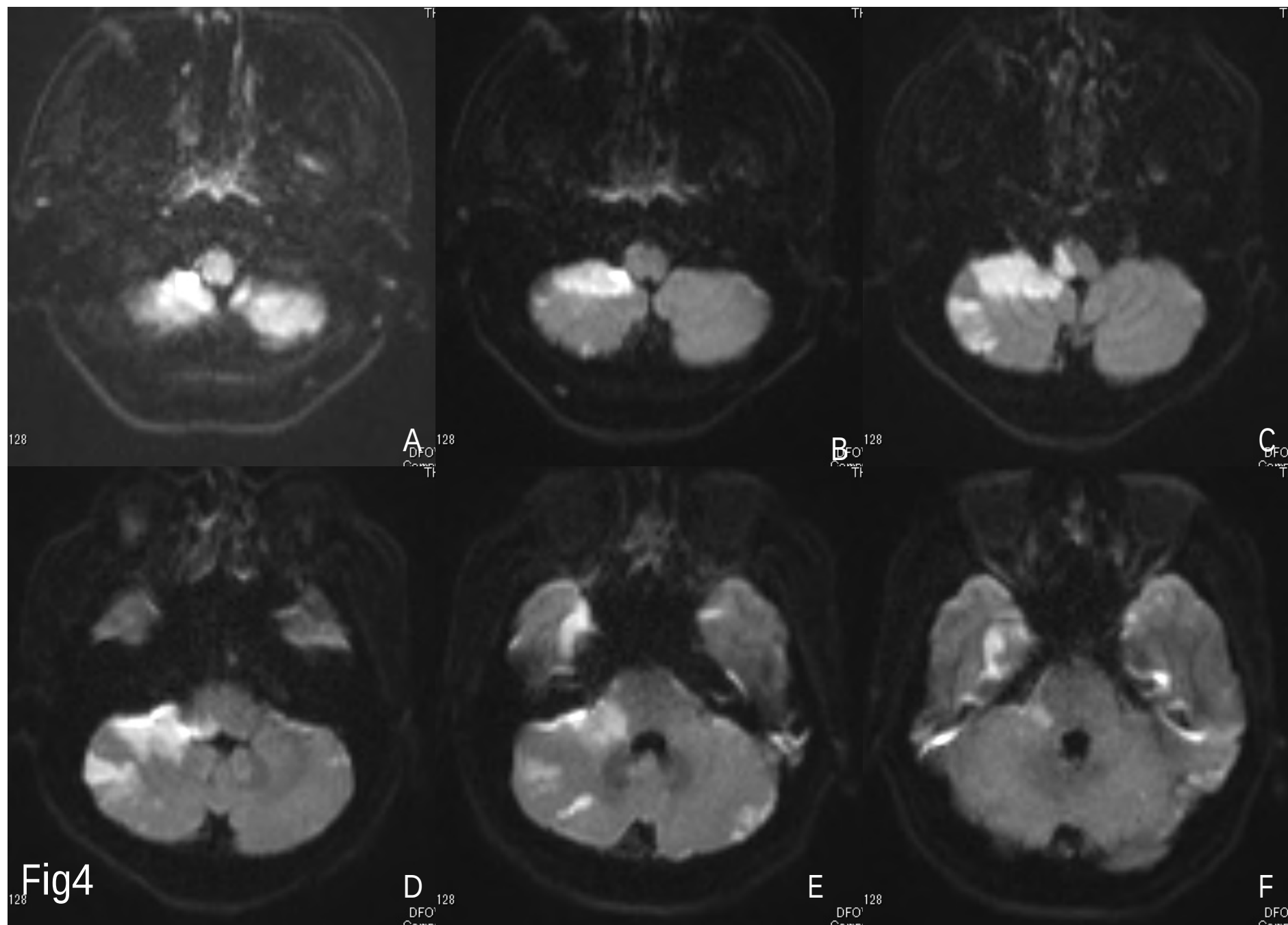


Fig4