

症 例

発達した後下小脳動脈に発生した解離性動脈瘤 —症例報告—

高瀬 創¹ 村田 英俊¹ 安久 正哲¹
吉川信一郎¹ 立石 健祐¹ 日暮 雅一¹
横山 高玲¹ 野地 雅人² 川原 信隆¹

Dissecting Aneurysm of Well-developed Posterior Inferior Cerebellar Artery: A Case Report

Hajime TAKASE, M.D.,¹ Hidetoshi MURATA, M.D.,¹ Masaaki AGU, M.D.,¹
Shin-ichiro YOSHIKAWA, M.D.,¹ Kensuke TATEISHI, M.D.,¹ Masakazu HIGURASHI, M.D.,¹
Taka-akira YOKOYAMA, M.D.,¹ Masato NOJI, M.D.,² and Nobutaka KAWAHARA, M.D.¹

¹Department of Neurosurgery, Yokohama City University Graduate School of Medicine, Yokohama, Kanagawa, and ²Department of Neurosurgery, Kanagawa Prefectural Ashigarakami Hospital, Kanagawa, Japan

Summary: We report a rare case of dissecting aneurysm of the posterior inferior cerebellar artery (PICA) with vascular variation. A 38-year-old man, who had no medical, familial or traumatic histories, presented with headache, nausea and mild consciousness disturbance. Computed tomography (CT) imaging demonstrated subarachnoid hemorrhage with intraventricular hemorrhage. Angiography disclosed an aneurysm of left PICA, which did not involve the vertebral artery. The PICA was well developed and widely perfused the cerebellum and lower brain stem, which was accompanied by lack of ipsi-lateral anterior inferior cerebellar artery (AICA) and contra-lateral PICA. The aneurysm was successfully treated by trapping and revascularization procedure with occipital artery (OA)-PICA anastomosis.

We suggest that congenital vascular variation related to well-developed PICA might lead to dissecting aneurysm, and that direct surgical treatment with bypass would be indicated for such patients to preserve hemodynamic integrity.

Key words:

- posterior inferior cerebellar artery
- subarachnoid hemorrhage
- dissecting aneurysm
- OA-PICA anastomosis
- vascular variation

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 42: 136-141, 2014

はじめに

後下小脳動脈 (posterior inferior cerebellar artery; PICA) に発生する動脈瘤の多くは椎骨動脈分岐部に生じ、

その発生頻度は頭蓋内動脈瘤の 0.49-3.0% とされている一方で、PICA に限局して発生するものは 0.28-1.4% と報告されている¹⁴⁾。その多くは囊状動脈瘤であり、解離性瘤はそのうち 6.7-41% とまれであり、いずれも症例報告に留ま

¹横浜市立大学大学院医学研究科 脳神経外科学, ²神奈川県立足柄上病院 脳神経外科 (受稿日 2013. 6. 29) (脱稿日 2013. 11. 5) [連絡先: 〒236-0004 神奈川県横浜市金沢区福浦 3-9 横浜市立大学大学院医学研究科 脳神経外科学 高瀬 創] [Address correspondence: Hajime TAKASE, M.D., Department of Neurosurgery, Yokohama City University Graduate School of Medicine, 3-9 Fukuura, Kanazawa-ku, Yokohama, Kanagawa 236-0004, Japan]

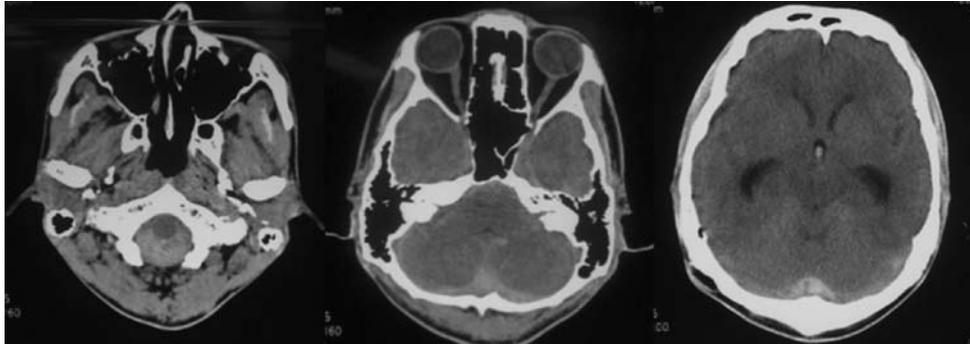


Fig. 1 Head CT scan on presentation showing diffuse SAH with intra-ventricular hemorrhage. SAH was especially thick in posterior fossa.

るがゆえ、発生原因や治療方針は症例ごとに検討されているのが実情である¹⁶⁾²⁶⁾³⁵⁾³⁷⁾。

今回われわれは、特徴的な血管の破格に合併した非分岐部後下小脳動脈解離性動脈瘤症例を経験したため、同動脈瘤の形態学的特徴を詳述し、発生原因と治療選択に関し文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：38歳，男性。

主訴：後頭部痛，嘔気，意識障害。

既往歴：内科疾患なし，外傷なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：前日に自覚した突然の後頭部痛・嘔吐・軽度の意識障害を主訴に，前医を救急受診した。初診時意識レベルはJapan Coma Scale (JCS) 2，項部硬直，脳神経症状なく，四肢の運動知覚も左右差はなかった。頭部単純CT上，後頭蓋窩優位のびまん性のくも膜下出血(subarachnoid hemorrhage; SAH)と，少量の第四脳室内出血を認めた(**Fig. 1**)。SAH (WFNS grade 2, Fisher group 4)の診断のうえ，同日(第1病日)入院となった。第2病日，脳血管撮影にて以下の所見の動脈瘤を認め，第6病日に加療目的に当院転送となった。

当院入院時所見：Japan Coma Scale (JCS) 2, Glasgow Coma Scale (GCS) 14 (E4V4M6)，血圧140/92 mmHg，軽度の意識障害以外の明らかな神経学的脱落症状を伴わず，前医初診時と大きな変化はなかった。

脳血管撮影所見：左椎骨動脈造影(vertebral arteriography; VAG)にて左PICAの近位部に紡錘状の拡張を認め，解離性動脈瘤からの出血と判断した(**Fig. 2**)。左PICAは大きく発達拡張しており，後頭蓋窩尾側の大部分を灌流していた。一方で左AICAと右PICAは画像上描出されず，また右AICAは低形成であった。なお，主幹動脈に明らかな血管攣縮所見は認めなかった。

入院後経過：第9病日，2回目の脳血管撮影を行い，主幹動脈に攣縮所見のないこと，解離腔の拡大がないことを再度確認した。その際，紡錘状動脈瘤上に新たに囊状隆起所見を認め，仮性瘤が増大し破裂が切迫していると判断した(**Fig. 3**)。第11病日に脳動脈瘤 trapping，後頭動脈-後下小脳動脈吻合術(OA-PICA anastomosis)を施行した。術中所見では，動脈瘤は紡錘状の変化を伴っており，解離性動脈瘤が強く示唆された。動脈瘤は穿通枝を含んでおらず，動脈瘤のトラッピングと遮断遠位部での後頭動脈-後下小脳動脈吻合を施行した(**Fig. 4**)。動脈瘤近傍に穿通枝が存在したため動脈壁の切除は断念し，血腫部分のみ摘出したが，動脈壁成分はみられなかった。術後経過は良好であり，第38病日に神経脱落症状なく独歩退院となった(**Fig. 5**)。術後3年経過した現在も後頭動脈-後下小脳動脈吻合の開存は良好であり，再出血や虚血症状は認めず経過良好である。

考 察

PICAに限局した動脈瘤は，画像技術の進歩に伴ってその診断精度が向上し，発生率は全脳動脈瘤の0.28-1.4%と報告されているが，そのほとんどは囊状動脈瘤であり，解離性のもは比較的まれと考えられている¹⁴⁾²⁹⁾³⁵⁾。頭蓋内解離性動脈瘤の発生に関しては，これまで梅毒などの感染関連のもの以外には，結節性多発動脈炎，線維筋性異形成などの全身疾患や外傷に関連するものが報告されている。しかし，PICAに限局する解離性動脈瘤は少数報告が散見されるのみであり，大血管解離への関与が示唆されている巨細胞性動脈炎に合併した症例や，外傷(手術)後に発生したものの，原因としてsegmental mediolytic arteriopathyが疑われる例などが報告されているが，発生原因はまだまだ同定されていない¹⁾³⁴⁾³⁷⁾。後頭蓋窩の血管系はそのvariationが豊富であるとされ，各種窓形成や共通幹(AICA-PICA)，PICA end, PICA extradural origin, 血管低形

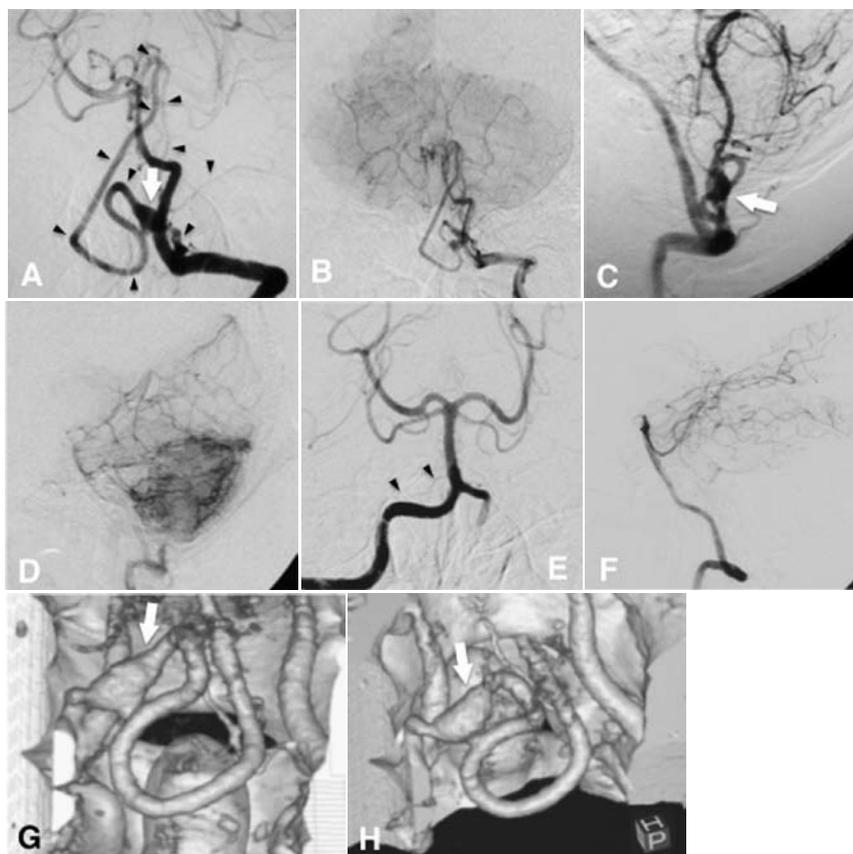


Fig. 2 Vertebral arteriography (VAG) on Day 2 (A-D: left, E, F: right, G, H: 3-D left). (A, B) Anteroposterior views of left VAG showing a dilated left PICA (black arrowheads) and a fusiform aneurysm (white arrow). (C, D, G, H) Lateral and Posteroanterior views of left VAG demonstrating left PICA widely perfused posterior fossa and its aneurysm (white arrow). (E) Anteroposterior view of right VAG showing hypoplasia of right AICA (black arrowheads) and absence of left AICA and right PICA. (F) Lateral view of right VAG indicating avascular area of caudal part of posterior fossa without left PICA.

成や欠損などのほか、交通動脈(PICA communicating artery)などまれなものも存在する¹¹⁾¹³⁾²¹⁾²²⁾³⁶⁾。Tokimuraらは、PICAに限局する動脈瘤には、なんらかの後頭蓋窩の血管破格(vascular variation)が高率に合併し(28例中20例、そのうち解離性動脈瘤には3例中2例)³⁵⁾、対側PICAまたは同側AICA欠損が最も多く、両枝欠損は嚢状瘤2例に認めた、と報告している。本例においては、左PICAは大きく発達拡張し、後頭蓋窩尾側の大部分を灌流する一方、左AICAと右PICAは確認できず、右AICAは低形成であった。対側のAICA低形成も伴っているものは、きわめてまれと考えられる。本例では病変部の病理組織は得られなかったが、術中所見では明らかに紡錘状を呈しており、解離性動脈瘤と推察された。本症例における解離形成における正確な成因は明らかでないが、少なくとも

も、著明に発達した左PICAと他のPICA、AICAの低形成から、血管形成異常に由来する脆弱性や、高い血管床血管径比による血行力学的ストレスの関与は示唆される。画像診断や情報処理技術の向上は近年特に著しく、とりわけ脳動脈瘤や頸動脈狭窄症については、数値流体解析(computational fluid dynamics: CFD)が進み、streamlineの作成とwall shear stress (WSS), oscillatory shear index (OCI), energy loss (EL)の解析が可能となってきている⁴⁾⁵⁾³¹⁾³²⁾。本例のような症例においては、今後、CFDの応用による発生要因の解明が期待される。

本邦では、頭蓋内動脈解離は椎骨脳底動脈系に多く、出血例における再出血は生命予後に特に大きく影響する²³⁾²⁸⁾。また、再出血までの期間は短く、治療のタイミングはとりわけ迅速である必要がある³³⁾。本例では、SAH発症



Fig. 3 Lateral view of the 2nd preoperative left VAG on the day 8 revealing the pseudo aneurysm of the fusiform aneurysm of left PICA (white arrow).

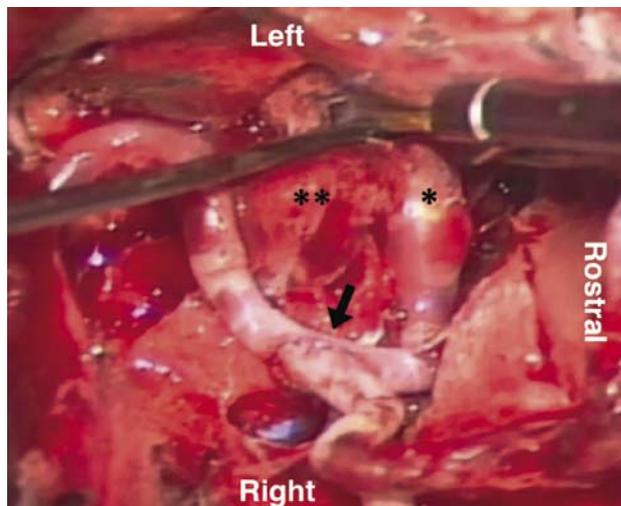


Fig. 4 Operative view showing the dissecting aneurysm (*) with clot (**) and OA-PICA anastomosis (black arrow), which was successfully placed at just distal of the aneurysm.

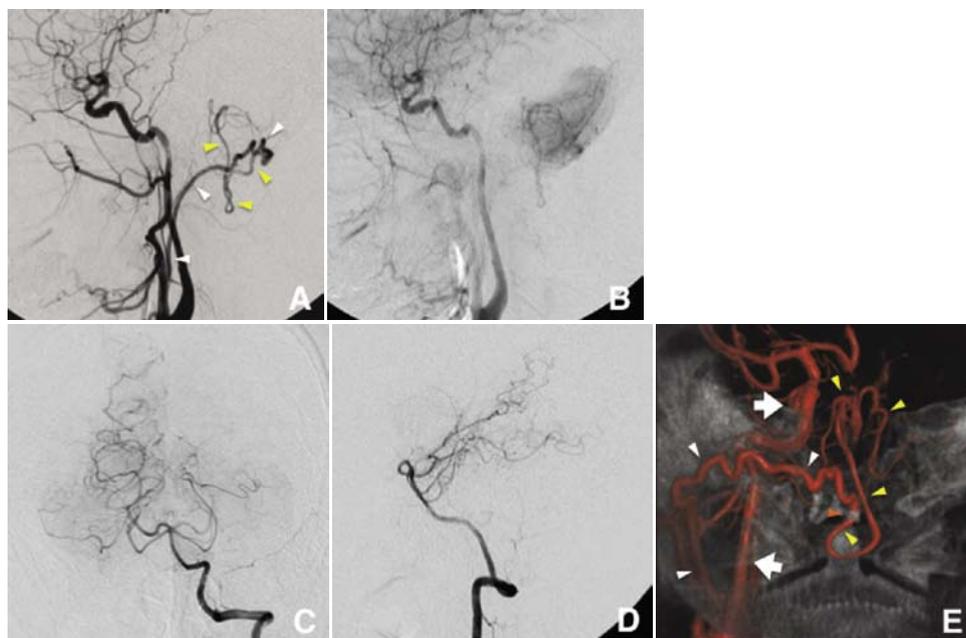


Fig. 5 Postoperative angiography on Day 25. (A, B) Lateral views of left common carotid arteriography (CCAG) showing the patency of OA (white arrowheads) and PICA (yellow arrowheads). Anteroposterior (C) and lateral (D) views of left VAG demonstrating that the aneurysm of left PICA was occluded. (E) Three-dimensional left CCAG showing the overview of OA (white arrowheads), OA-PICA anastomosis point (orange arrowhead), PICA (yellow arrowhead), and internal carotid artery (white arrow).

後、第6病日に転送され、脳血管攣縮が懸念されたが、脳血管攣縮が少ないとされる後方循環病変であったこと、その後の脳血管撮影で紡錘状動脈瘤上に切迫破裂を示唆する嚢状隆起所見の増大がみられたことから、再出血予防治療

が優先されると判断し第11病日に直達術による治療を行った¹²⁾¹⁷⁾。

頭蓋内解離性動脈瘤の治療に関しては、内科的治療は、急性期を脱した例の転帰は比較的良好であったとする報告

もあるが²⁷⁾、再出血した際には mortality が高く、外科治療が第一選択と考えられている。後頭蓋窩に発生した解離性動脈瘤においては、近年血管内治療の術者技術とデバイスの進歩に伴い、親血管動脈瘤閉塞で良好な成績を得られたとする報告が多い²⁾⁸⁾¹⁵⁾²⁰⁾³⁰⁾³⁸⁾。Cellern らは親血管閉塞を行わない血管内治療も可能であり有用としているが、その長期成績や、直達術に対する優位性、劣性はいまだ不明である⁶⁾³³⁾。直達術は、解離瘤の特性上、多くは clipping 困難であり、wrapping や trapping, proximal occlusion での治療となることもまれではない¹⁰⁾¹⁸⁾¹⁹⁾。PICA に限局した動脈瘤においては、後頭蓋窩の解離性動脈瘤の治療と同様、血管内治療を推奨する報告が多いが、一方で種々の合併症や治療後の再発率が高いことが報告されている³⁾⁷⁾⁹⁾²⁴⁾。直達術は、直視下での確実な再破裂予防が可能であることに加えて、外減圧や脳室ドレナージを迅速に同時施行でき、水頭症をきたす可能性の高い同部破裂症例の脳圧管理の点で有利といえる²⁵⁾³⁵⁾。一方で動脈瘤の部位や形状、脳幹への穿通枝の存在により、機能温存の観点上 clipping のみならず trapping も困難な場合があることを銘記しておく必要がある¹⁴⁾。解離性 PICA 動脈瘤に限定した治療報告は少ないが、後頭蓋窩に生じた他の解離性動脈瘤と同様、高率に出血・再出血をきたし、予後不良と報告され、前述の治療に準じて行われることが多い⁸⁾¹⁴⁾¹⁶⁾³³⁾。本症例では、動脈瘤の形状や、親血管の灌流域とその機能解剖的観点から、血管内治療での確実な再破裂予防と親血管温存両立は困難と判断した。また、比較的若年であることから、確実な血行再建が必須であると判断して直達術(trapping + bypass)を選択し、良好な長期成績を得られた¹⁾。

結 語

後下小脳動脈に発生した解離性動脈瘤の出血例を経験した。同部位の解離例はきわめてまれであり、著明に発達した左 PICA と他の PICA、AICA の低形成による血行力学的ストレスが出血性動脈解離の発生に起因したものと推察された。後方循環系の出血性動脈解離に対する治療は、血管内治療が一定の成果をあげているが、直達術による血行再建の必要性が高い症例も一部存在することを銘記し、個々の症例に応じた治療戦略を構築する必要がある。

文 献

- 1) Ali MJ, Bendok BR, Tawk RG, *et al*: Trapping and revascularization for a dissecting aneurysm of the proximal posteroinferior cerebellar artery: technical case report and review of the literature. *Neurosurgery* 51: 258-262; discussion 262-253, 2002
- 2) Anxionnat R, de Melo Neto JF, Bracard S, *et al*: Treatment of hemorrhagic intracranial dissections. *Neurosurgery* 53: 289-300; discussion 300-281, 2003

- 3) Bradac GB, Bergui M: Endovascular treatment of the posterior inferior cerebellar artery aneurysms. *Neuroradiology* 46: 1006-1011, 2004
- 4) Cebral JR, Mut F, Weir J, *et al*: Quantitative characterization of the hemodynamic environment in ruptured and unruptured brain aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol* 32: 145-151, 2011
- 5) Cebral JR, Castro MA, Burgess JE, *et al*: Characterization of cerebral aneurysms for assessing risk of rupture by using patient-specific computational hemodynamics models. *AJNR Am J Neuroradiol* 26: 2550-2559, 2005
- 6) Cellerini M, Mangiafico S, Ammannati F, *et al*: Ruptured, dissecting posterior inferior cerebellar artery aneurysms: endovascular treatment without parent vessel occlusion. *Neuroradiology* 50: 315-320, 2008
- 7) Chalouhi N, Jabbour P, Starke RM, *et al*: Endovascular treatment of proximal and distal posterior inferior cerebellar artery aneurysms. *J Neurosurg* 118: 991-999, 2013
- 8) Dinichert A, Rüfenacht DA, Tribolet N: Dissecting aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery: report of four cases and review of the literature. *J Clin Neurosci* 7: 515-520, 2000
- 9) Fujimura M, Nishijima M, Midorikawa H, *et al*: Fatal rupture following intra-aneurysmal embolization for the distal posterior inferior cerebellar artery aneurysm with parent artery preservation. *Clin Neurol Neurosurg* 105: 117-120, 2003
- 10) Fujitsu K, Ishiwata Y, Gondo G, *et al*: Wrap-clipping with a Dacron mesh silastic sheet. Technical note. *J Neurosurg* 80: 336-337, 1994
- 11) 藤原和則, 蘭藤 順, 金山重明: PICA Communicating Artery に発生した多発性動脈瘤の 1 例. *脳神経外科* 27: 177-182, 1999
- 12) Hirashima Y, Kurimoto M, Hori E, *et al*: Lower incidence of symptomatic vasospasm after subarachnoid hemorrhage owing to ruptured vertebrobasilar aneurysms. *Neurosurgery* 57: 1110-1116; discussion 1110-1116, 2005
- 13) Hlavin ML, Takaoka Y, Smith AS: A "PICA communicating artery" aneurysm: case report. *Neurosurgery* 29: 926-929, 1991
- 14) Hudgins RJ, Day AL, Quisling RG, *et al*: Aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery. A clinical and anatomical analysis. *J Neurosurg* 58: 381-387, 1983
- 15) Iihara K, Sakai N, Murao K, *et al*: Dissecting aneurysms of the vertebral artery: a management strategy. *J Neurosurg* 97: 259-267, 2002
- 16) Ishikawa T, Suzuki A, Yasui N: Distal posterior inferior cerebellar aneurysms—report of 12 cases. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 30: 100-108, 1990
- 17) Kang MS, Kim JH, Kang HI, *et al*: Risk factors affecting clinical outcome of ruptured vertebrobasilar saccular aneurysms. *J Cerebrovasc Endovasc Neurosurg* 14: 175-180, 2012
- 18) Kawamata T, Tanikawa T, Takeshita M, *et al*: Rebleeding of intracranial dissecting aneurysm in the vertebral artery following proximal clipping. *Neurol Res* 16: 141-144, 1994
- 19) Kitanaka C, Morimoto T, Sasaki T, *et al*: Rebleeding from vertebral artery dissection after proximal clipping. Case report. *J Neurosurg* 77: 466-468, 1992
- 20) Lim SM, Choi IS, Hum BA, *et al*: Dissecting aneurysms

- of the distal segment of the posterior inferior cerebellar arteries: clinical presentation and management. *AJNR Am J Neuroradiol* 31: 1118-1122, 2010
- 21) Lister JR, Rhoton AL Jr, Matsushima T, *et al*: Microsurgical anatomy of the posterior inferior cerebellar artery. *Neurosurgery* 10: 170-199, 1982
 - 22) Mazighi M, Porter PJ, Rodesch G, *et al*: Vascular anomalies and the risk of multiple aneurysms development and bleeding. *Interv Neuroradiol* 8: 15-20, 2002
 - 23) 水谷 徹, 有賀 徹: クモ膜下出血で発症した椎骨脳底動脈解離性動脈瘤における再出血の時期, 頻度と転帰 自験 20 例および文献 48 例の検討. *脳卒中の外科* 22: 389-393, 1994
 - 24) Mukonoweshuro W, Laitt RD, Hughes DG: Endovascular treatment of PICA aneurysms. *Neuroradiology* 45: 188-192, 2003
 - 25) Nussbaum ES, Madison MT, Goddard JK, *et al*: Peripheral intracranial aneurysms: management challenges in 60 consecutive cases. *J Neurosurg* 110: 7-13, 2009
 - 26) 大石博通, 古口徳雄, 小林繁樹, ほか: 【出血発症の PICA involved dissection aneurysm】出血発症の PICA involving dissecting aneurysm の治療—順行性血行を生かした近位部母血管閉塞術—. *脳卒中の外科* 33: 155-159, 2005
 - 27) 小野純一, 樋口佳則, 町田利生, ほか: くも膜下出血で発症した椎骨脳底動脈系の頭蓋内解離性動脈病変の検討—病態および外科的治療成績—. *脳卒中の外科* 35: 124-129, 2007
 - 28) 小野純一, 平井伸治, 芹澤 徹, ほか: 椎骨脳底動脈系解離性動脈病変の転帰決定因子 再出血に影響を及ぼす因子の検討. *脳神経外科ジャーナル* 11: 265-270, 2002
 - 29) Pasqualin A, Da Pian R, Scienza R, *et al*: Posterior inferior cerebellar artery aneurysm in the fourth ventricle: acute surgical treatment. *Surg Neurol* 16: 448-451, 1981
 - 30) Sedat J, Chau Y, Mahagne MH, *et al*: Dissection of the posteroinferior cerebellar artery: clinical characteristics and long-term follow-up in five cases. *Cerebrovasc Dis* 24: 183-190, 2007
 - 31) Shojima M, Oshima M, Takagi K, *et al*: Magnitude and role of wall shear stress on cerebral aneurysm: computational fluid dynamic study of 20 middle cerebral artery aneurysms. *Stroke* 35: 2500-2505, 2004
 - 32) 高尾洋之, 山本 誠, 大塚 忍, ほか: 【脳動脈瘤に対する新たな考え方】数値流体力学(CFD)を用いた脳動脈瘤解析. *脳神経外科ジャーナル* 21: 298-305, 2012
 - 33) Tawk RG, Bendok BR, Qureshi AI, *et al*: Isolated dissections and dissecting aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery: topic and literature review. *Neurosurg Rev* 26: 180-187, 2003
 - 34) Teitelbaum GP, Dowd CF, Larsen DW, *et al*: Endovascular management of biopsy-related posterior inferior cerebellar artery pseudoaneurysm. *Surg Neurol* 43: 357-359, 1995
 - 35) Tokimura H, Yamahata H, Kamezawa T, *et al*: Clinical presentation and treatment of distal posterior inferior cerebellar artery aneurysms. *Neurosurg Rev* 34: 57-67, 2011
 - 36) 鶴殿弘貴, 白石哲也, 辻 武寿, ほか: 真の“PICA communicating artery” aneurysm の 1 例. *脳神経外科* 25: 763-766, 1997
 - 37) Yamakawa H, Kaku Y, Yoshimura S, *et al*: Two cases of dissecting aneurysm of the distal posterior inferior cerebellar artery: possible involvement of segmental mediolytic arteriopathy in the pathogenesis. *Clin Neurol Neurosurg* 107: 117-122, 2005
 - 38) 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