

特異な血管撮影所見を呈した血栓化動脈瘤の一例

土方保和、高田英和、大里俊明、大竹安史、鈴木 聡、遠藤英樹
中垣裕介、本庄華織、佐々木雄彦、中川原譲二、中村博彦
中村記念病院 脳神経外科、財団法人北海道脳神経疾患研究所

Completely Thrombosed Cerebral Aneurysm that Presented a Specific Views in Intracranial Digital Subtraction Angiography: A Case Report

Yasukazu HIJIKATA, M.D., Hidekazu TAKADA, M.D., Toshiaki OSATO, M.D., Yasufumi OTAKE, M.D., Satoshi SUZUKI, M.D., Hideki ENDO, M.D., Yusuke NAKAGAKI, M.D., Kaori HONJO, M.D., Takehiko SASAKI, M.D., Jyoji NAKAGAWARA, M.D., and Hirohiko NAKAMURA, M.D.

Summary

We experienced one case of cerebral aneurysm which showed complete spontaneous thrombosis and presented specific views in intracranial digital subtraction angiography (DSA). A women of 56-years-old presented with low grade headache came to our hospital. Magnetic resonance image (MRI) showed a high intense mass 2 centimeters in diameter existed in her temporal lobe and revealed a marked enhancement around it. We suspected the mass to be a thrombosed aneurysm, but angiograms disclosed no aneurysm. Intracranial DSA showed convergency of fine vessels occurling from orbital frontal artery and the circulation delay of precentral artery instead. We tried to perform surgical operation to extract the mass and understood that to be an aneurysm arising from M2 superior trunk involved both prefrontal artery and precentral artery. We trapped the aneurysm after revascularization of precentral artery by anastomosis with superficial temporal artery (STA). ICG video angiography was useful to determine the operation strategy.

はじめに

現在脳動脈瘤の診断において破裂緊急時を除けば非侵襲的な検査として第一にMRAが用いられ、治療計画を立てる際には3D-CTAやAngiography（以下AG）が用いられることが一般的である。各々は動脈瘤が動脈の一部であり内部に血流があることをもとにその血流を捉え撮像を行っている。技術の発達に伴いミリ単位の正確な作像や立体的な作像が可能になっており日々の診療に貢献するところは大きい。しかし血流がなければ血管の一部であると認識されないため、血栓化した動脈瘤は時として診断が困難になることがある。今回我々は内部が完全に血栓化し、MRAでは動脈瘤として描出されず、またAG上特異な所見を呈した血栓化脳動脈瘤の一例を経験したので報告する。

症 例

症 例: 56歳、女性

主 訴: 頭痛、頸部痛

現病歴: 頭痛、頸部痛を自覚するようになり、1週間様子をみたが改善しなかった。

近医受診しMRIで頭蓋内異常陰影を指摘され当院に紹介受診となった。

既往歴: 左乳癌、橋本病

現 症: 意識清明。明らかな神経学的脱落所見なし。

頭痛・頸部痛も軽快しており髄膜刺激症状もなかった。

画像所見

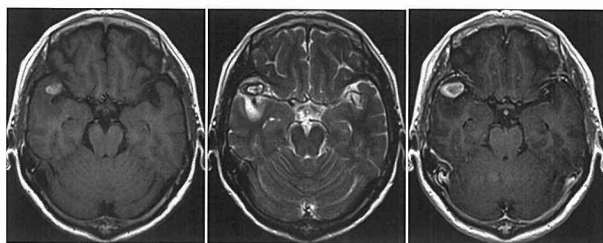


Fig. 1 初診時MRI

左: T1; 側頭葉先端からシルビウス裂に突出する腫瘍を認める。

中: T2; 腫瘍の周囲に浮腫を伴う。

右: Gd造影T1; 腫瘍の辺縁はGdで増強される。

当科初診時に撮像した頭部MRIでは右側頭葉先端からシルビウス裂に突出した最大径約2cmのT1強調画像（以下T1）、T2強調画像（以下T2）ともに高信号を呈し、ガドリニウム（以下Gd）で辺縁が造影される腫瘍性病変がみられた（Fig. 1）。頭部MRAでは動脈瘤を疑わせる所見はなかった（Fig. 2）。症状も消失しており、外来での

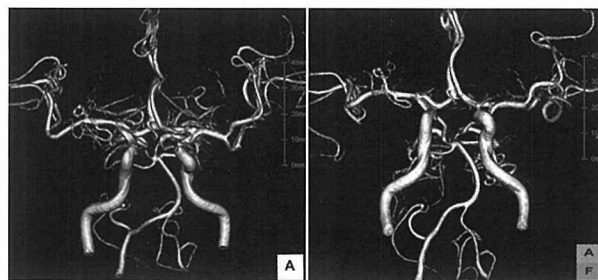


Fig. 2 初診時頭部MRA; 動脈瘤を示唆する所見はない。

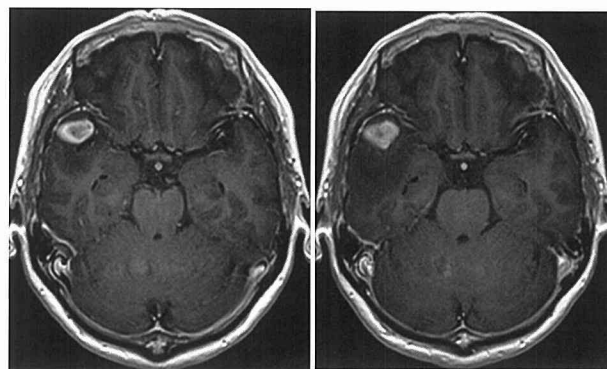


Fig. 3 左: 初診時MRI (Gd造影T1)
右: 20日目MRI (Gd造影T1); 腫瘍は一部後方に突出している。

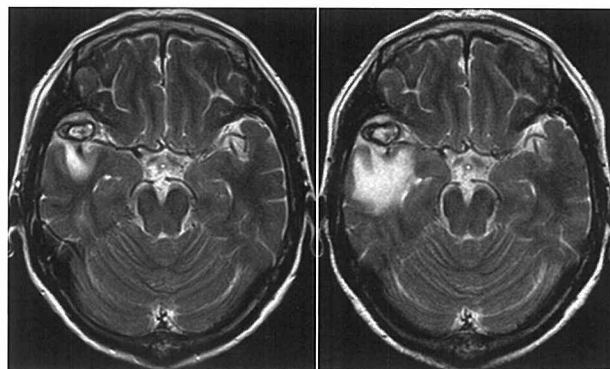


Fig. 4 左: 初診時T2; 右: 24日目T2; 著明な浮腫の増大を認める。

経過観察を行った。20日目に撮像したMRI (Gd造影T1)では腫瘍径が増大し辺縁が一部後方に突出している所見を認めたため (Fig. 3)、入院精査を行った。MRI (T2)では腫瘍の周囲の浮腫が著明に増大していた (Fig. 4)。頭部CTでも腫瘍の周囲の浮腫がみられ、造影CTでは腫瘍の辺縁が造影された (Fig. 5)。AGでは明らかなstainや動脈瘤を疑わせる所見はなく、不自然に狭窄や拡張している血管もなかった。しかし動脈相でorbital frontal artery起始部から分岐する異常網状血管、precentral arteryの造影遅延を認めた (Fig. 6)。TI-SPECTでは早期

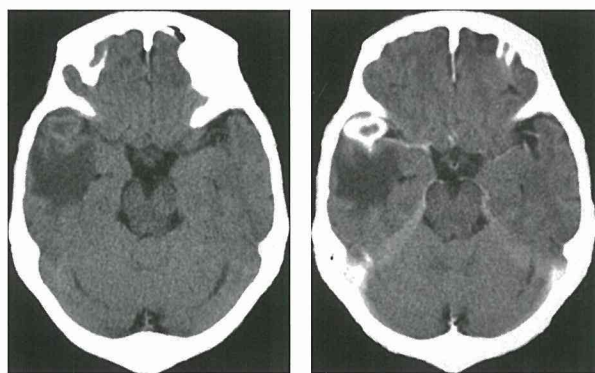


Fig. 5 右: plane CT、左: 造影CT
腫瘍の辺縁が造影され、周囲に浮腫を認める。

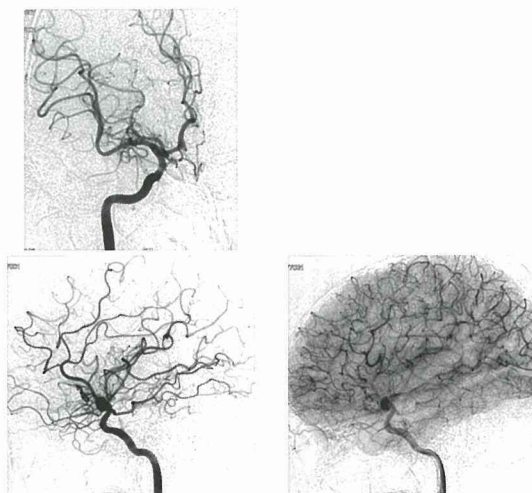


Fig. 6 Angiogram
左上: 正面像動脈相; orbital frontal artery起始部から発生する異常血管網を認める。
左下: 側面像動脈相、右下: 側面像静脈相
precentral arteryは造影遅延し静脈相でよく描出されている。

相でT/N 3.09、後期相でT/N 1.78と悪性腫瘍にも比肩する高集積を認めた (Fig. 7)。

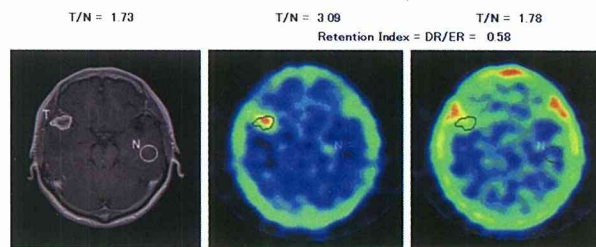


Fig. 7 TI-SPECT
中: 早期相、右: 後期相; 早期相で腫瘍に一致した高集積を認める。

画像所見上腫瘍の形状や周囲の浮腫にダイナミックな変化があったことは何らかの出血性イベントを示唆していると考えた。脳動静脈奇形を考慮したがAG上nidusやdrainerを疑わせるearly veinの描出はなかった。血栓化動脈瘤や脳腫瘍なども考慮したが特徴的な所見がなかった。

手術所見

全身麻酔下で右前頭側頭開頭を行い、シルビウス裂を開放すると速やかに腫瘍に到達した。脳との境界は明瞭であり、表面は滑らかであった。腫瘍の周囲を慎重に剥離すると腫瘍の一部は側頭葉に埋没していた。Subpial dissectionを行って全貌を露出すると、腫瘍はM2 superior trunkが紡錘状に拡大した動脈瘤であることが判明した。一部は突出したblebとなっており、同部位は黄色調で動脈硬化性変化が強かった。動脈瘤の遠位部から2本の血管 (prefrontal artery, precentral artery) が分岐しており、動脈瘤周囲には白く虚脱した血管も観察され

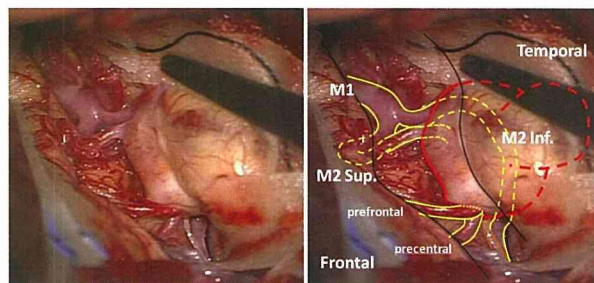


Fig. 8 術中所見
M2 superior trunkが紡錘状に拡張しており、遠位部から2本の動脈が分岐している。

た。また、前頭弁蓋部にはnidusとはいえないが、血管が通常より集束している所見がみられた (Fig. 8)。インドシアニングリーン (以下ICG) を用い観察すると動脈瘤は描出されず、prefrontal artery、precentral arteryともに順行性に描出された (Fig. 9)。動脈瘤近位の血管にtemporary clipをかけて再度撮影すると、prefrontal

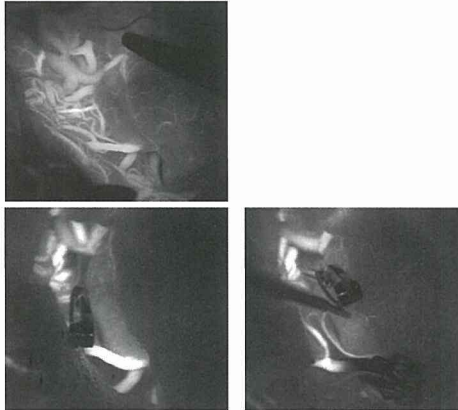


Fig. 9 術中ICG video angiogram
 左上: 動脈瘤露出時
 prefrontal artery, precentral arteryともに順行性に描出された。動脈瘤表面にはvasa vasorumが描出されている。
 左下: 動脈瘤近位遮断時
 prefrontal arteryは逆行性に速やかに描出され、precentral arteryは順行性に遅れて描出された。
 右下: 動脈瘤trap時
 prefrontal arteryは逆行性に描出されたが、precentral arteryは描出されなかった。

arteryは逆行性に速やかに描出され、precentral arteryは僅かに遅延した (Fig. 9)。次にprefrontal artery、precentral arteryの両方にtemporary clipをかけ動脈瘤をtrapした状態で撮影すると、prefrontal arteryは逆行性に描出されたが、precentral arteryは描出されなかった。また動脈瘤壁にはvasa vasorumと思われる微小血管網がみられた (Fig. 9)。術中所見から、治療戦略としては動脈瘤のtrappingが必要であると判断した。その際、ICG video angiographyの所見を根拠にprefrontal arteryには血行再建は不要であるがprecentral arteryには必要であると判断した。同血管に対しsuperficial temporal artery (STA) を吻合し、続いて動脈瘤を切除摘出した (Fig. 10)。摘出後ICG video angiographyを行いprefrontal arteryの逆行性血流、precentral arteryのpatencyを確認した。

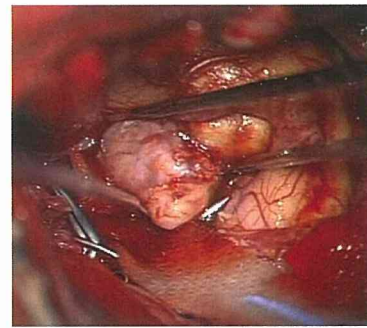


Fig. 10 術中写真: 摘出した動脈瘤
 動脈硬化性に黄色に変調したblebが側頭葉に埋没していた。

術後経過

明らかな神経学的脱落所見はみられず、画像上虚血性変化も認めなかった。術後AGでbypass patencyと、術前に遅延がみられたprecentral arteryが術中に同定したprecentral arteryと一致することを確認した (Fig. 11)。

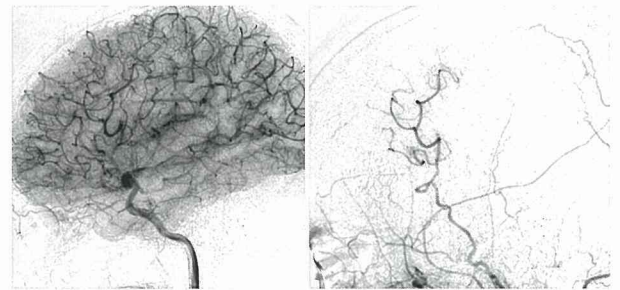


Fig. 11 Angiogram
 左: 術前側面像静脈相、右: 術後側面像動脈相 (外頸動脈選択撮影)
 術前に造影遅延した動脈とSTAと吻合した動脈が一致している (=precentral artery)。

病理所見

摘出組織をHE染色すると、腫瘤壁は外膜と厚い内膜で構成されており中膜が欠損もしくは菲薄化していた。内腔にはリンパ球が浸潤した肉芽組織が充満しており、活動性の炎症を示唆していた。また内腔にはvasa vasorumあるいはrecanalizationを思わせる微小血管が存在していた (Fig. 12)。膿瘍に類似した所見であったが、血栓化動脈瘤の所見にも矛盾していなかった。

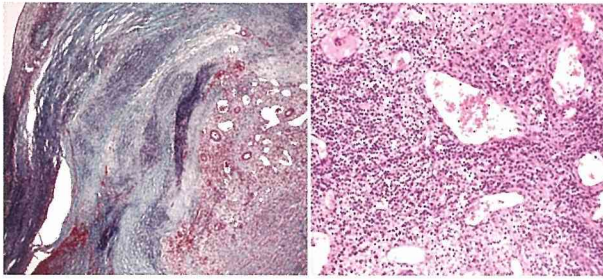


Fig. 12 病理組織: HE染色

左: ×100; 外膜、厚く肥厚した内膜が観察されるが中膜が欠損もしくは菲薄化している。壁に近い内腔には微小血管が発達している。
右: ×400; 動脈瘤中心部に近い内腔にも微小血管が発達しリンパ球の浸潤が観察される。

考 察

本症例では完全に血栓化していたためAGでも確定診断には至らず、他の血管奇形や腫瘍との鑑別が困難であった。部分血栓化動脈瘤はそう珍しいものではないものの、本症例のように完全に血栓化したものについての報告は散見されるのみである¹⁻⁵⁾。動脈瘤が完全に血栓化する確率についてOhtaら⁶⁾は上小脳動脈瘤31例のうち8例(26%)で血栓化がみられ、1例(3%)が完全に血栓化していたと述べ、Pozzatiら⁷⁾は巨大動脈瘤の13%~20%に完全血栓化がみられると報告している。

通常の嚢状動脈瘤増大の機序として、以前よりhemodynamic stressの影響が報告され、その他にもshear stressに伴うvascular remodelingなどが考えられてきた。しかし、この機序だけでは説明できない症例が多く存在し、特に巨大動脈瘤の場合は、破裂と小出血を起こし血腫辺縁が新たな動脈瘤壁になりながら増大する機序⁸⁾や、動脈瘤壁内や内腔に繰り返し出血しながら増大する機序、動脈瘤内の血栓化と再開通を繰り返しながら増大する機序が指摘されている。Schubigerら⁹⁾は巨大脳動脈瘤のCT画像所見から、脳動脈瘤壁が造影されることより、いわゆる栄養血管(vasa vasorum)が豊富であること、動脈瘤内には層状の血栓が存在し開存腔に近い血栓は古く、開存腔から離れた壁側にある血栓がむしろ新しい所見を呈することから、動脈瘤や壁に近い内腔のvasa vasorumが血管に富む慢性硬膜下血腫の被膜のように繰り返し壁内や瘤内に出血し増大すると報告した。本症例でも術中ICG video angiographyにて動脈瘤壁の

vasa vasorumの存在を確認しており(Fig. 9)、経過中のMRIでの動脈瘤辺縁の造影所見からもvasa vasorumが豊富であることを確認している。さらに局所的な動脈瘤の外側方向への増大、同時期の脳浮腫の著明な増強などは動脈瘤壁内の出血が推測される所見であり、Schubigerの説を裏付ける所見であると考えた。

また、本症例ではMRAやAGにて前頭弁蓋部に小血管が集合するような異常血管網が認められた。この成因としては、術中に動脈瘤周囲に白く虚脱した血管を認めたことから、動脈瘤の増大に伴い周囲の細動脈が閉塞し、その血流を補うために側副血行路が発達し血管網を形成したことが考えられた。

巨大動脈瘤の自然歴が極めて不良であることは以前より報告されており¹⁰⁾、死因の多くは脳動脈瘤の破裂で、大きいものほど出血しやすい¹¹⁾とされている。本症例は大きさからすると大型動脈瘤(最大径12~25 mm)に分類されるが、動脈瘤の発見から短期間に壁内出血を起こしており、動脈瘤破裂をいつおこしてもおかしくない状況であると思われ、高い死亡率と合わせて考慮するとやはり積極的な治療が必要であったと考える。

動脈瘤の治療手段としては直達術もしくはコイル塞栓術があるが、血栓化動脈瘤に対してコイル塞栓術はそもそもそのmass effectの減弱しづらさ、コイルのmigration、それに伴う血流腔の再開通、動脈瘤の増大、周囲の浮腫などの問題があり適応になり辛い。また本症例は完全血栓化動脈瘤であるためneck clippingは不可能であり、血栓除去を伴った血管形成的なclippingも正常部位の血管径、手技の煩雑さ、虚血性合併症などを考慮すると不相当だと思われた。動脈瘤のproximal ligationも一つの手段であったが、動脈瘤近位部の血行を遮断した際にもprefrontal arteryへの逆行性血流があり、vasa vasorumを介した動脈瘤への栄養を考えると再出血の完全な予防にはならない可能性があった。実際病理所見では、完全血栓化動脈瘤であるにも関わらず内部には微小循環が存在していた。よって動脈瘤のtrappingが適当であると判断したが、その際問題となるのが動脈瘤遠位部の循環確保であった。バルーン閉塞試験で評価することは本症例では不可能であり、術前にtoleranceを評価することは困難であった。

本症例ではICG video angiographyが末梢循環の評価に有用であった。動脈瘤をtrapした状態で撮影を行うと、prefrontal arteryは逆行性に描出され、しかも循環遅延が

なかった。一方precentral arteryは描出されず、後者には明らかに循環血流が不足していることがわかった。結果としてprecentral arteryにのみSTA-MCA bypassを行い末梢循環が確保できた。ただ、ICGで良好に描出されることが虚血性合併症を起こさないだけの十分な血流量があることを意味しているわけではなく、この点は課題であった。現在は血流量を半定量的に評価できる機能が備わっており、trapping前後の血流量を比較することでより安全性が高まっている。

ま と め

今回我々は術前診断に苦慮した完全血栓化動脈瘤の一例を経験した。血管撮影では正常血管に変化がみられないうちで、小血管が集束している所見を認めた。治療に際しては術中ICG video angiographyが有用であった。

文 献

- 1) 反町隆俊, 倉部聡, 矢島直樹ほか: GDCで治療した後下小脳動脈瘤; DSAで写らない血栓化動脈瘤が血管造影後3D-CTで分かった一例. JNET: Journal of Neuroendovascular Therapy, 2007; 1: 233.
- 2) Nakau H, Nagatani H, Nakau R, et al: Acute disappearance of ruptured aneurysm located near the origin of the superior cerebellar artery. Neurol Med Chir (Tokyo), 2007; 47: 468-470.
- 3) 岡秀宏, 倉田彰, 宮坂佳男ほか: 術前診断が困難であった完全血栓性末梢性中大脳動脈瘤の1例. 脳神経外科, 1994; 22: 677-680.
- 4) Whittle IR, Dorsch NW, Besser M: Spontaneous thrombosis in giant intracranial aneurysms. J Neurol Neurosurg Psychiatry, 1982; 45: 1040-1047.
- 5) Whittle IR, Williams DB, Halmagyi GM, et al: Spontaneous thrombosis of a giant intracranial aneurysm and ipsilateral internal carotid artery: a case report. J Neurosurg, 1982; 56: 287-289.
- 6) Ohta H, Sakai N, Nagata I, et al: Spontaneous total thrombosis of distal superior cerebellar artery aneurysm. Acta Neurochir (Wien), 2001; 143: 837-843.
- 7) Pozzati E, Nuzzo G, Gaist G, et al: Giant aneurysm of

the pericallosal artery: case report. J Neurosurg, 1982; 57: 566-569.

- 8) Artmann H, Vonofakos D, Muller H, et al: Neuroradiologic and neuropathologic findings with growing giant intracranial aneurysm. Review of the literature. Surg Neurol, 1984; 21: 391-401.
- 9) Schubiger O, Valavanis A, Wichmann W: Growth-mechanism of giant intracranial aneurysms; demonstration by CT and MR imaging. Neuroradiology, 1987; 29: 266-271.
- 10) Drake CG: Cerebral arteriovenous malformations: considerations for and experience with surgical treatment in 166 cases. Clin Neurosurg, 1979; 26: 145-208.
- 11) Swearingen B, Heros RC: Fatal rupture of a thrombosed giant basilar artery aneurysm. Surg Neurol, 1985; 23: 299-302.
- 12) Michael WF: Posterior fossa aneurysms simulating tumors. J Neurol Neurosurg Psychiatry, 1974; 37: 218-223.