

〈脳神経外科速報 vol.32 no.5 e20223205d, 2022〉

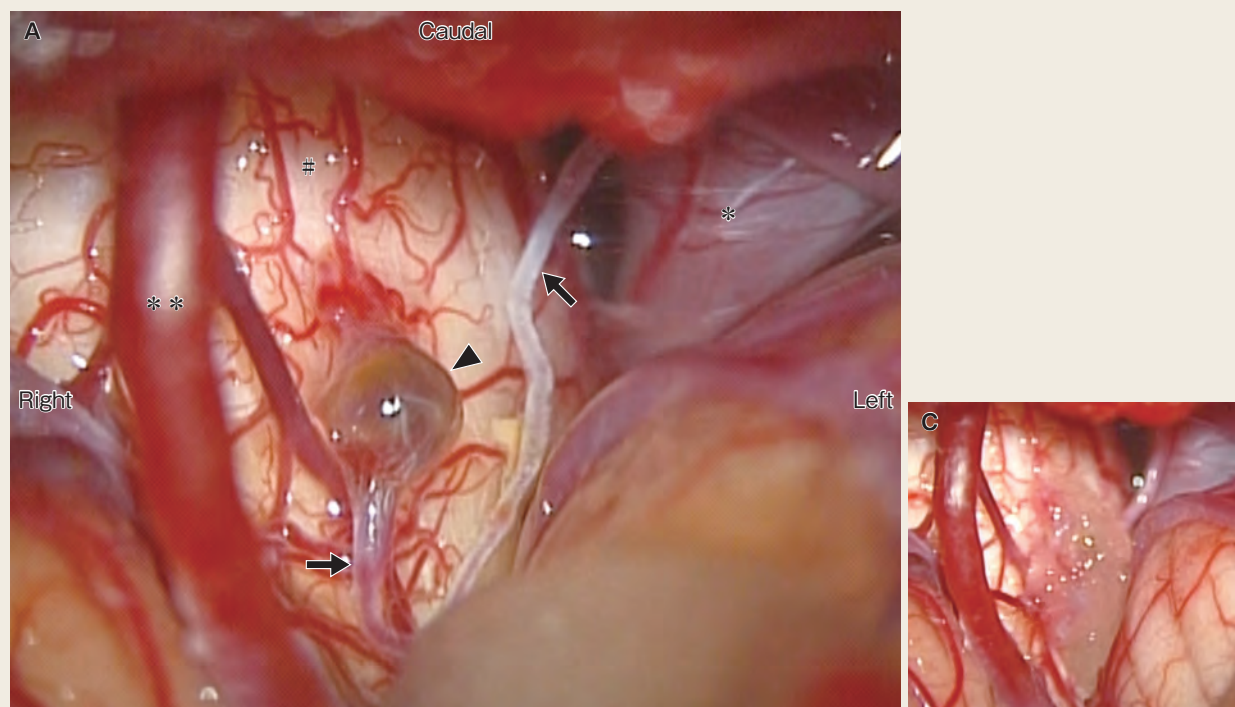
# 延髄背側表面の椎骨動脈穿通枝破綻によるくも膜下出血の1例

水上秀紀<sup>1)</sup>, 西川重幸<sup>1)</sup>, 植田裕<sup>1)</sup>, 武笠晃丈<sup>2)</sup>

1) 宮崎県立延岡病院脳神経外科 〒882-0853 宮崎県延岡市新小路 2-1-10

2) 熊本大学病院脳神経外科

## Key Slide



**Fig. 3**

A : Operative view shows the medulla oblongata (#), Lt. VA (\*), Lt. PICA caudal loop (\*\*), and an aneurysm (arrow head). It was located in the middle of VA perforating branch to medulla oblongata (arrow).

C : Postoperative view. We performed wrapping of the aneurysm.

# Subarachnoid hemorrhage due to rupture of the vertebral artery perforating branch: A case report

Shuki MIZUKAMI <sup>1)</sup>, Shigeyuki NISHIKAWA <sup>1)</sup>, Yutaka UEDA <sup>1)</sup>, Akitake MUKASA <sup>2)</sup>

1) Department of Neurosurgery, Miyazaki Prefectural Nobeoka Hospital

2) Department of Neurosurgery, Kumamoto University Hospital

We report a rare case of subarachnoid hemorrhage (SAH) due to rupture of the vertebral artery perforating branch running on the dorsal surface of medulla oblongata. A 55-year-old female with rheumatoid arthritis and hypertension developed sudden occipital pain. She was diagnosed with SAH, and it was dominant in the left cerebellomedullary cistern and the 4th ventricle. But neither 3D-CT angiography (3DCTA), MRI nor distal subtraction angiography (DSA) could identify the bleeding point. So initially, she was treated as SAH due to unknown origin. Reexamined DSA on day 16 demonstrated a small (2mm) saccular aneurysm at cranial loop of left posterior inferior cerebellar artery (PICA). On day 22, clipping surgery with a midline suboccipital craniotomy was performed. But in the region where an aneurysm was predicted, only strong bending of the PICA was observed, and no aneurysm was present. Thus we searched true source of bleeding in surgical area, we discovered

a microaneurysm formed in a perforating branch of the vertebral artery running on the dorsal surface of medulla oblongata. It was bulging and discoloration, we considered the aneurysmal change as true bleeding point. Since it was located in perforating branch, trapping or resection of the aneurysm was impossible. Therefore, only wrapping of aneurysm was performed to prevent rerupture. The postoperative and postdischarge course was good. This is the first report of SAH due to perforating branch of the vertebral artery, and we discussed this rare case with some literatures.

**Key Words :** subarachnoid hemorrhage, vertebral artery perforating branch, microaneurysm, exploratory surgery

(Received February 9, 2022; Accepted April 4, 2022)

Correspondence to Shuki MIZUKAMI, M.D.,

Department of Neurosurgery, Miyazaki Prefectural Nobeoka Hospital, 2-1-10 Shinkoji, Nobeoka-shi, Miyazaki, 882-0853, Japan

E-mail: harry212weekend [at] gmail.com

## I. はじめに

後頭蓋窩のくも膜下出血は一般的に椎骨動脈-後下小脳動脈分岐部動脈瘤や椎骨動脈解離、硬膜動静脈瘻などが原因であることが多い。稀なものとして後下小脳動脈 (posterior inferior cerebellar artery : PICA) の遠位部や前脊髄動脈に動脈瘤を認めた報告が数例あるが、椎骨動脈穿通枝に動脈瘤を認めた報告はこれまでにない。今回我々は、延髄背側表面の椎骨動脈穿通枝破綻によるくも膜下出血の症例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

## II. 症 例

**患 者**：55 歳女性。

**主 訴**：後頭部痛，嘔吐。

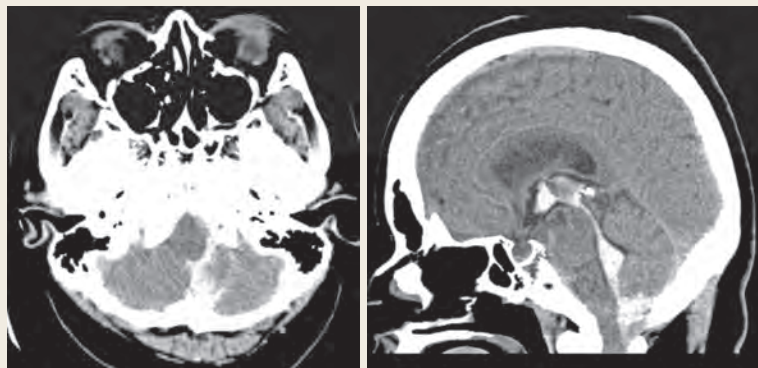
**既往歴**：関節リウマチ，高血圧。

**現病歴**：自宅で突然の後頭部痛と嘔吐で発症。救急隊判断で脳卒中が疑われたため、当院にへり搬送となった。

**現 症**：Japan coma scale (JCS) 2, Glasgow coma scale (GCS) 14 (E4V4M6)。軽度の構音障害あり，明らかな四肢麻痺なし。

**検査結果**：頭部 CT で左小脳底面から延髄周囲を中心にくも膜下出血を認めた (Fisher group 3)。第三脳室まで脳室内血腫もあるが，水頭症の合併なし (Fig. 1)。3D-CT angiography (3DCTA) を行うも，明らかな脳動脈瘤や出血源となり得る異常は認めなかった。

**治療経過**：第 2 病日に digital subtraction angiography (DSA) を施行するも，



**Fig. 1**

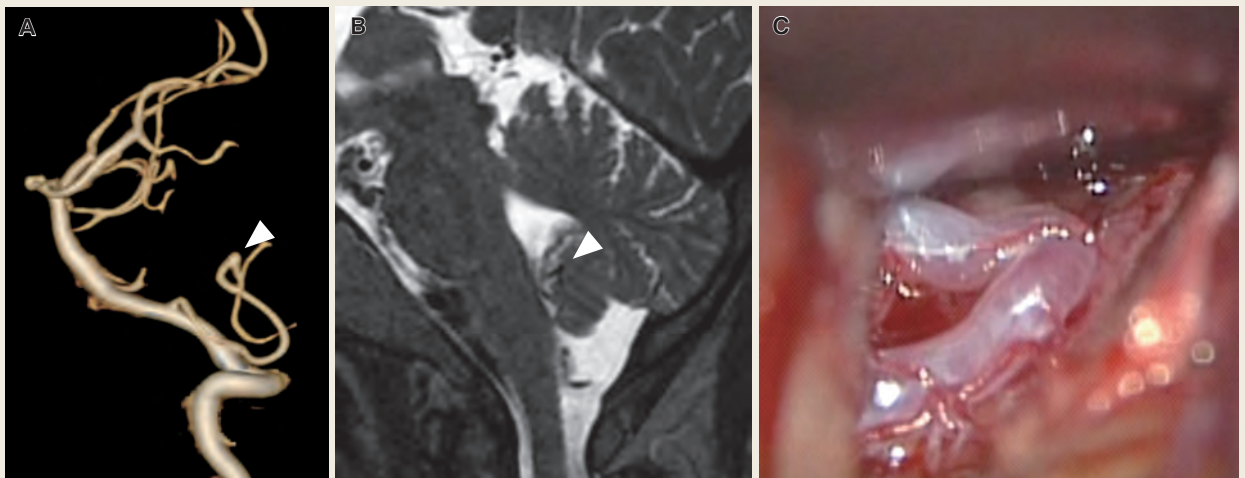
CT showed SAH, it was dominant in the left cerebellomedullary cistern and the 4th ventricle.

やはり明らかな脳動脈瘤や解離などの異常は認めなかった。MRI〔MR angiography (MRA)〕および basi-parallel anatomical scanning (BPAS) でも異常は認めなかった。出血源が特定できなかつたため、血圧管理と輸液負荷を行い、血管攣縮期の管理を行った。再出血や血管攣縮による症状出現なく経過した。

第16病日にDSAの再検査を施行したところ、左PICA遠位部、屈曲部に2mm程度の膨隆を認め、嚢状動脈瘤が疑われた(Fig. 2A)。第14病日に施行したMRIと照らし合わせてみると、脳室に近く、出血源として矛盾しないと思われた(Fig. 2B)。この病変に対し第22病日に開頭クリッピング術を行う方針とした。

**手術所見：**腹臥位、正中後頭下開頭。大槽のくも膜を切開し、延髄および左PICA caudal loopを確認した。目的である左PICA遠位部を確認したが、直視下に形状を観察すると血管の強い屈曲で、動脈瘤ではなかった(Fig. 2C)。サージセルとフィブリングルーでラッピングを行った。術野を観察すると、延髄背側表面の小血管に1mm大の膨隆と変色を認めた。左椎骨動脈から分岐する穿通枝に動脈瘤を形成していた(Fig. 3)。術前の血腫の分布からも、この病変が今回の出血源と判断した。動脈瘤の前後には拍動も確認され、延髄への虚血が懸念されたため遮断や切除は不可能であった。こちらもラッピングのみを行い、手術を終了した。

術後経過は良好で、第32病日にmodified Rankin Scale (mRS) 1で自宅退院となった。現時点で約1年半の経過観察を行っているが、再出血や水頭症の合併なく経過している。

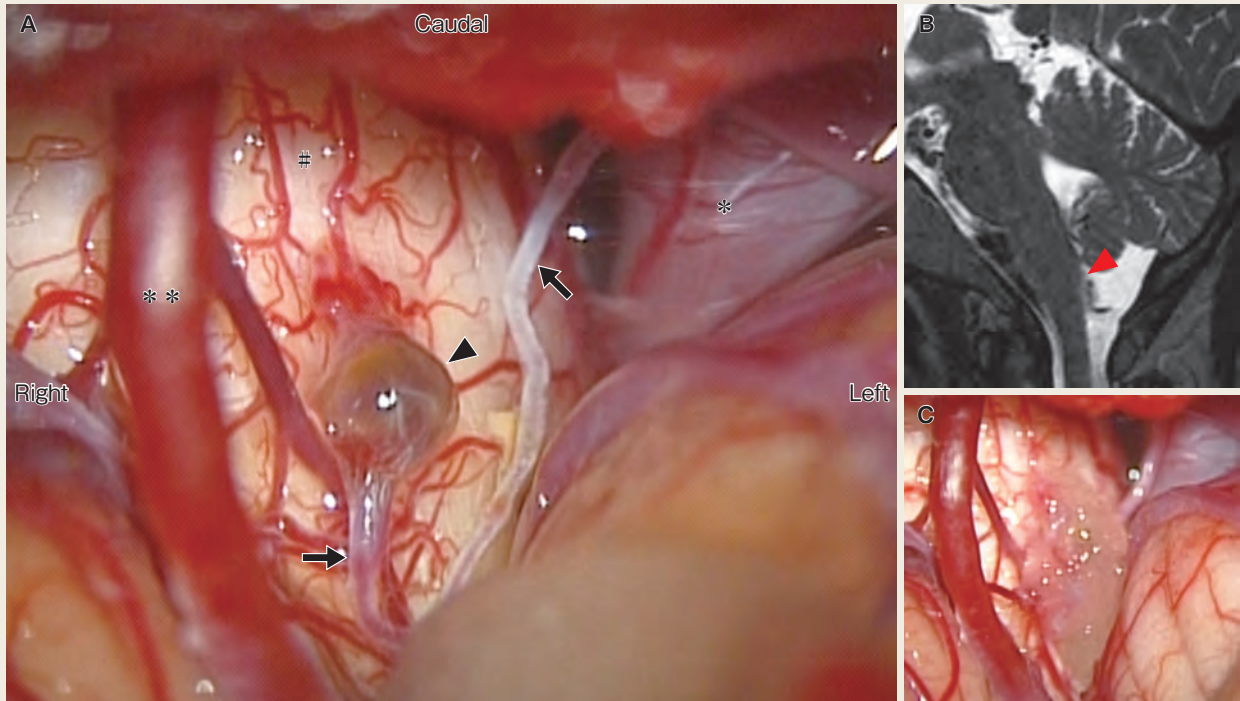


**Fig. 2**

A : DSA (3D, Lt. VAG) suggested a saccular aneurysm at the Lt. distal PICA (arrow head).

B : MRI showed that the lesion was located near the 4th ventricle.

C : Operative view showed that the lesion was strong bending of the PICA.



**Fig. 3**

A : Operative view shows the medulla oblongata (#), Lt. VA (\*), Lt. PICA caudal loop (\*\*\*) and an aneurysm (arrow head). It was located in the middle of VA perforating branch to medulla oblongata (arrow).  
 B : The location of the aneurysm on MRI. It could not be identified by imaging studies.  
 C : Postoperative view. We performed wrapping of the aneurysm.

### III. 考 察

椎骨動脈の穿通枝は延髄全体，上部頸髄，小脳後下面，第四脳室脈絡叢，橋下部被蓋などを栄養している。径  $100 \sim 520 \mu\text{m}$  で分岐や本数には個人差があるが，前脊髄動脈を含め約 3 本存在している。その分布は PICA 分岐部の遠位側が 10 mm 以上の場合は遠位側優位に，遠位側が 10 mm 未満の場合は近位側優位に存在すると報告されている<sup>1)</sup>。狩猟し得た限りでは，前脊髄動脈を除く椎骨動脈穿通枝が出血源となった報告はない。局在が近いものとしては PICA 遠位部に限局したものや前脊髄動脈に病変を認めた報告があるが<sup>2, 3)</sup>，頻度は低く数例程度である<sup>3, 4)</sup>。

椎骨脳底動脈系の動脈瘤については，胎生期の網状構造および血管遺残が関係しているとも推測されており<sup>5)</sup>，今回のような病変も関係している可能性がある。また頭蓋内の解離性動脈瘤に関しては，これまで梅毒などの感染，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<sup>6)</sup>。PICA に限局した解離性動脈瘤に関しても分節性動脈中膜壊死 (segmental arterial

mediolysis : SAM) や巨細胞性動脈炎に合併した症例, 外傷に関連したものが報告されている<sup>7)</sup>. 今回の症例でもこのような疾患を合併していた可能性は否定できないが, 病変の切除が困難であったため病理学的な評価を行うことはできなかった.

その他, 高血圧性脳内出血の原因とされる Charcot-Bouchard microaneurysm も考えられる. 高血圧性脳内出血の機序として径 300  $\mu$ m 以下の小血管 (穿通枝) が血管壊死 (またはフィブリノイド壊死) を起こし, microaneurysm を形成・破綻する機序が提唱されている<sup>8)</sup>. 1868 年に Charcot と Bouchard が剖検脳で報告<sup>9)</sup>, その後手術所見としても microaneurysm の存在が証明されている. 主に脳内出血, 特にレンズ核線条体動脈での関与が多いが, 脳室内出血の原因となった例も報告されている<sup>10)</sup>. くも膜下出血の報告はないが, 今回の症例は高血圧の既往もあり, 関与している可能性がある.

くも膜下出血の症例で, 初回の DSA で出血源を同定できない例は 15 ~ 20% 程度と言われている<sup>11)</sup>. その中には中脳周囲の脳槽にくも膜下出血を認める, perimesencephalic nonaneurysmal SAH (PNSAH) が含まれる. PNSAH の発症機序としては中脳近傍の静脈・毛細血管からの出血や脳底動脈の壁内血腫が考えられており<sup>12)</sup>, 転機は良好である. しかし初回の DSA で出血源が指摘できなかった SAH 症例のうち, 54% で再出血を来したという報告<sup>13)</sup> があり, 再出血を考慮した出血源の同定・治療の選択は非常に重要である. また初回の DSA で出血源が指摘できなかった SAH 症例のうち, 44% は発症 6 週間までに出血源を同定し得たという報告<sup>14)</sup> もあり, 画像検査を繰り返すことは重要と考えられる.

今回の症例は比較的血腫量が多く, 脳室内への流入からしても動脈性の出血が疑われた. 術中所見と血腫の分布から, 椎骨動脈穿通枝の動脈瘤を出血源と同定した. 術前に DSA や MRI を繰り返し行ったが, 後方視的に見てもこの病変は指摘できず, 大きさからは画像検査では同定不可能な病変であった. 出血源が同定できないとして開頭手術を行わなければ再出血を来していた可能性もあり, 今回の症例では開頭手術による直視下の検索が, 出血源の同定と良好な治療経過に寄与したと考えられる. 術前診断とは異なる結果ではあったが, 術前の CT から後頭蓋窩の出血であることは間違いなく, 後頭下開頭による手術は有効であったと考えられる. Jafar らは画像検査で出血源が同定できなかったが, 臨床的に動脈瘤の存在が疑わしい症例に exploratory surgery を施行し, 6 例中 5 例で術中所見として動脈瘤を認めている (1 例は PNSAH)<sup>15)</sup>. 画像検査で出血源が同定困難であっても, 動脈性の出血が疑われ, かつ出血源の局在がある程度限定できる場合は, 開頭手術が有効である可能性が示唆された.

## IV. 結 語

---

延髄背側表面の椎骨動脈穿通枝破綻によるくも膜下出血という非常に稀な症例を経験した。画像検査では出血源を同定できず、開頭手術で同定に至った症例であった。出血源不明のくも膜下出血であっても、再出血予防が必要な動脈性の出血が疑われ、出血源の局在がある程度限定できる場合は、開頭手術を考慮すべきである。

COI：著者全員は脳神経外科学会へのCOI自己申告を完了しています。本論文の発表に際して開示すべきCOIはありません。

## 文献

---

- 1) Saeki N, et al: Where to Choose in Therapeutic Occlusion of Vertebral Artery -Based on Observation of Perforators of Normal Cadaver Brain-. *Surgery for Cerebral Stroke* 19: 423-8, 1991
- 2) Kawamura S, et al: Ruptured anterior spinal artery aneurysm: a case report. *Surg Neurol* 51: 608-12, 1999
- 3) Yoshida M, et al: A Case of Subarachnoid Hemorrhage Due to Intracranial Anterior Spinal Artery Aneurysm. *Surgery for Cerebral Stroke* 40: 135-9, 2012
- 4) Horiuchi T, et al: Characteristics of distal posteroinferior cerebellar artery aneurysms. *Neurosurgery* 53: 589-95, 2003
- 5) Shimooka N, et al: [An Extracranial Aneurysm in the Distal Posterior Inferior Cerebellar Artery Located at the Tonsillomedullary Segment: Case Report and Review of the Literature]. *No Shinkei Geka* 45: 715-22, 2017
- 6) Takase H, et al: Dissecting Aneurysm of Well-developed Posterior Inferior Cerebellar Artery: A Case Report. *Surgery for Cerebral Stroke* 42: 136-41, 2014
- 7) Yamakawa H, 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: 117-22, 2005
- 8) Tomimoto H: Concept and classification of small vessel disease. *Japanese Journal of Stroke* 35: 128-32, 2013
- 9) Charcot JM, Bouchard C: Nouvelle recherche sur la pathogenie de l'hemorragie cerebrale. *Arch Physiol Norm Pathol* 1: 110-27, 1868
- 10) Yamamoto K, et al: A case of intraventricular hemorrhage caused by a ruptured lateral posterior choroidal artery aneurysm. *Japanese Journal of Stroke* 33: 424-9, 2011
- 11) Rinkel GJ, et al: Subarachnoid hemorrhage without detectable aneurysm. A review of the causes. *Stroke* 24: 1403-9, 1993
- 12) Schievink WI, Wijndicks EF: Origin of pretruncal nonaneurysmal subarachnoid hemorrhage: ruptured vein, perforating artery, or intramural hematoma? *Mayo Clin Proc* 75: 1169-73, 2000
- 13) Andaluz N, Zuccarello M: Yield of further diagnostic work-up of cryptogenic subarachnoid hemorrhage based on bleeding patterns on computed tomographic scans. *Neurosurgery* 62: 1040-6, 2008
- 14) Elhadi AM, et al: Spontaneous subarachnoid hemorrhage of unknown origin: hospital course and long-term clinical and angiographic follow-up. *J Neurosurg* 122: 663-70, 2015
- 15) Jafar JJ, Weiner HL: Surgery for angiographically occult cerebral aneurysms. *J Neurosurg* 79: 674-9, 1993