

〈脳神経外科速報 vol.33 no.3 e20233303b, 2023〉

脳幹脳動静脈奇形に関連する脳底動脈穿通枝動脈瘤破裂によるくも膜下出血に対して母血管を温存した瘤内コイル塞栓術を施行した1例

佐野顕史¹⁾, 佐藤和彦¹⁾, 園田順彦²⁾

1) 鶴岡市立荘内病院脳神経外科 〒997-8515 山形県鶴岡市泉町4-20

2) 山形大学医学部脳神経外科

Key Slide



Fig. 1

(A) CT demonstrating diffuse SAH. Gadolinium enhanced-T1 weighted image (B) and CTA (C) show ruptured BAPA.

A surgical case of intra-aneurysmal coil embolization for basilar artery-long circumflex artery ruptured aneurysm associated with brainstem arteriovenous malformation

Kenshi SANO¹⁾, Kazuhiko SATO¹⁾, Yukihiro SONODA²⁾

1) Department of Neurosurgery, Tsuruoka Municipal Shonai Hospital

2) Department of Neurosurgery, Yamagata University, school of medicine

Basilar artery perforator aneurysms (BAPA) with arteriovenous malformation (AVM) are rarely described in the literature. We described here a 71-year-old man who presented with diffuse subarachnoid hemorrhage at World Federation of Neurosurgical Societies grade 3. Initial angiography revealed ruptured BAPA and left pontine AVM. At day 21, intra-aneurysmal coil embolization was performed. After the procedure, the aneurysm was occluded, and slight brainstem infarction appeared. To the best of our knowledge, of the 89 cases of BAPAs reported, only four cases had AVM. When

BAPAs enlarge or do not disappear after conservative treatment, additional therapy such as intra-aneurysmal embolization, direct surgery, and stenting should be considered.

Key Words : basilar artery perforator aneurysm, interventional radiology, coil embolization, flow related aneurysm

(Received September 27, 2022; Accepted November 16, 2022)

Correspondence to Kenshi SANO, M.D.,

Department of Neurosurgery, Tsuruoka Municipal Shonai Hospital, 4-20 Izumimachi, Tsuruoka-shi, Yamagata, 997-8515, Japan

E-mail: k-sano [at] med.id.yamagata-u.ac.jp

要 旨

脳動静脈奇形 (arteriovenous malformation : AVM) に関連した脳底動脈穿通動脈瘤 (basilar artery perforator aneurysms : BAPA) 破裂によるくも膜下出血 (subarachnoid hemorrhage : SAH) を呈した稀な症例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症例は 71 歳男性, WFNS grade III で発症し, 頭部 computed tomography にてびまん性の SAH と脳底動脈本幹左側より分岐する穿通枝上に破裂 BAPA, および親動脈が流入血管となった左脳幹 AVM を認めた。当初は保存的加療を行ったが, 増大傾向を示し, 21 日目に瘤内コイル塞栓術を施行した。動脈瘤は閉塞され, 穿通枝は温存し術後の脳幹梗塞は最小限であった。我々の渉猟しうる限りでは 89 例の BAPA が報告されており, 破裂リスクが高く, 根治術を考慮すべきである。そのうち AVM に関連するものは 4 例と稀であった。本症例を含めて 5 例中 4 例で瘤内コイル塞栓術が可能であった。

I. 緒 言

脳動静脈奇形 (arteriovenous malformation : AVM) に関連した脳動脈瘤は約 15% に生じ, 年間破裂率は 7% と高い¹⁾。そのうち脳底動脈の穿通枝に発生した動脈瘤 (basilar artery perforator aneurysm : BAPA) はこれまで 4 例のみの報告があり, 稀な病態である。今回我々は, 脳幹 AVM に関連する BAPA 破裂によるくも膜下出血 (subarachnoid hemorrhage : SAH) の 1 例を文献的な考察を加えて報告する。

II. 症 例

患 者 : 71 歳男性。

既往歴 : 特記すべき事項なし。喫煙 10 本 / 日 × 40 年。

現病歴 : めまい, 軽度の後頸部痛と嘔気 で発症し搬送された。来院時意識 JCS 3-10, GCS E3V4M4。巣症状は認めなかった。頭部 computed tomography (CT) にて脚間槽に厚い脳底槽にびまん性の SAH を認めた (Hunt & Kosnik grade 3, WFNS grade III, Fisher group 3) (Fig. 1A)。CT angiogram で脳底動脈 (basilar artery : BA) 本幹から左側へ分岐する回旋枝 (circumferential artery : CA) の起始直後に約 2 mm 大の動脈瘤を認めた (Fig. 1B)。血管撮影 (digital subtraction angiography : DSA) にて CA の末梢の左橋外側に AVM が存在し, 左上錐体静脈

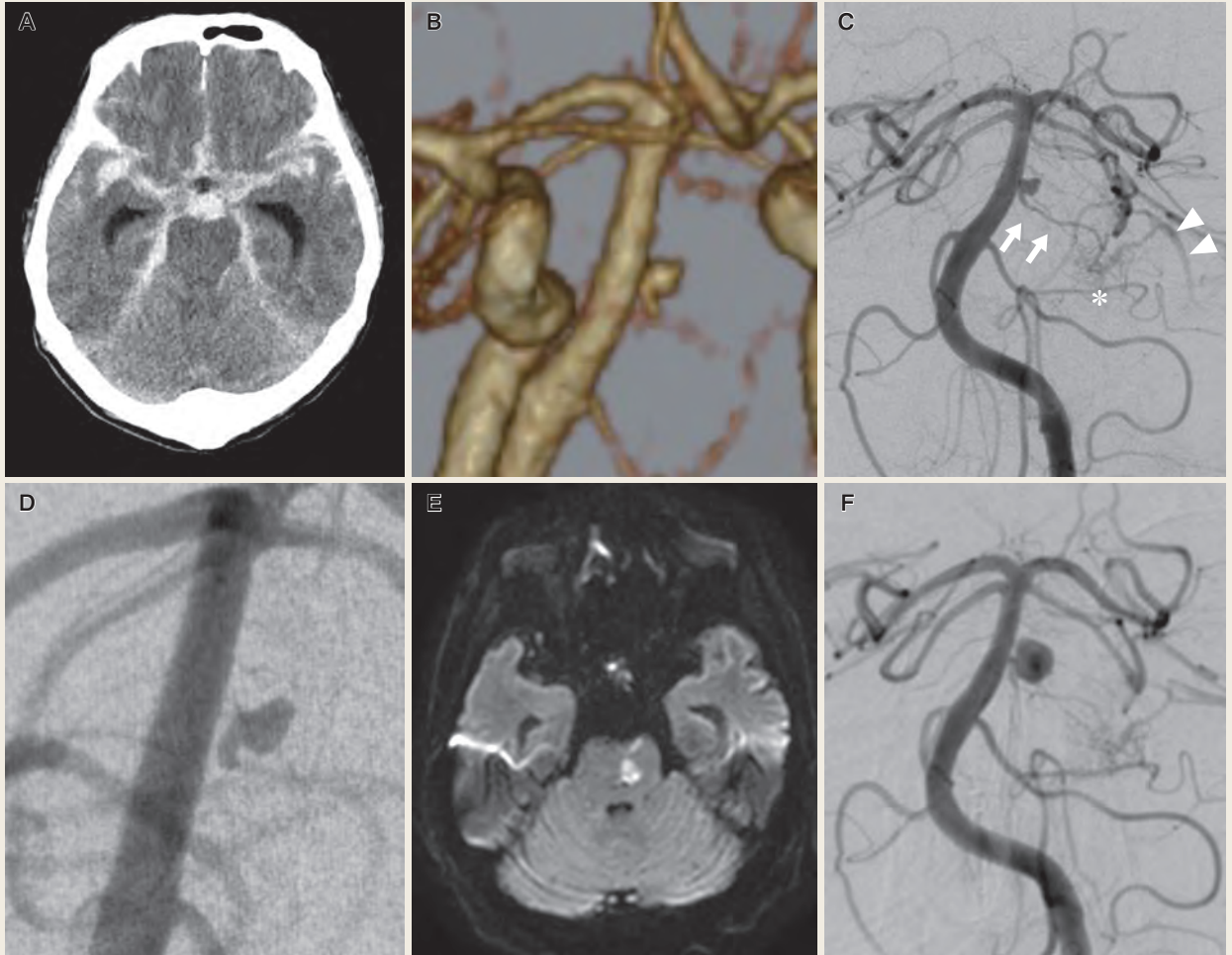


Fig. 1

(A) CT demonstrating diffuse SAH. Gadolinium enhanced-T1 weighted image (B) and CTA (C) show ruptured BAPA. CTA (D) at day 7 shows an enlarged aneurysm. Initial DSA antero-posterior (AP) (E) and oblique (F) views demonstrate the pontine AVM (asterisk) fed by the CA (arrow). Venous drainage was to the left superior petrosal vein (arrowhead).

へと流出していた (Fig. 1C)。以上より、左 CA が流入血管である左脳幹 AVM に関連する BAPA 破裂による SAH と診断した。直達術 (direct surgery : DS) は侵襲が大きく血管内治療 (interventional radiology : IVR) を企図したが、CA の入口部が不明瞭 (Fig. 1D) であるため待機的に治療する方針とした。その後右麻痺が出現し、発症 13 日目の MRI で BAPA 近傍の左脳幹傍正中部に梗塞を認めた (Fig. 1E)。発症 19 日目に DSA を行い、BAPA は 6 mm に増大していた (Fig. 1F)。初回の DSA と同様に CA の入口部は不明瞭だったが、拡大した動脈瘤へ造影剤が流入していた。CA の入口部が推定でき、再破裂が切迫していると考えられ、発症 21 日目に IVR を施行した。

術中所見：全身麻酔下で右大腿動脈に6 Fr Long sheathを挿入し、左椎骨動脈の高位まで6 Fr Fubuki 90 cm（朝日インテック）を留置し全身へパリン化した。Transform Compliant 4 mm × 10 mm〔日本ストライカー（balloon catheter, 以下BC）〕を母血管である左CA分岐部まで誘導し、次いでExcelsior SL 10-90° pre shaped〔日本ストライカー（micro catheter, 以下MC）〕を0.014 inch Synchro 2 standard（日本ストライカー）で探るようにしてBAPAに誘導した。MGWは誘導できたがMCの追従は容易ではなく、遠位のBAでBCを拡張し、MCが末梢に逸脱しないようにすることでBAPAに誘導できた（Fig. 2A）。流入動脈にMCが楔入したため、椎骨動脈撮影ではBAPAおよびCAは造影されなかった（Fig. 2B）。BAPAに関与していない穿通枝からAVMが描出されたことから、BAPAのあるCAを閉塞させてもAVMへの血流が減少することは期待しにくく、また穿通枝梗塞のリスクを危惧し、CAを温存させた瘤内コイル塞栓術（intraaneurysmal coil embolization：IACE）を企図した。1本目のコイルはTarget ultra 5 mm × 10 cm（日本ストライカー）を選択してコイルフレームを作成した。コイルのデリバリーワイヤーを引き抜くたびにBAPAに陰圧がかかりコイル塊が縮小し、動脈瘤壁が脆弱であることを示唆する所見であった（Fig. 2C, D）。計15本、58 cmのコイルを留置し、CAを温存したIACEを完遂した（Fig. 2E）。術後はわずかな左橋外側に梗塞が出現したが（Fig. 2F）、神経症状の悪化は認めなかった。mRS 3で回復期病院へ転院し、後日AVMに対する治療を行う方針とした。

III. 考 察

BAPAはBA本幹から分岐する穿通枝に動脈瘤の頸部が存在し、BAとは関与しない動脈瘤と定義されている²⁾。SAHで発症したBAPAの報告は我々の渉猟しうる限り89例あった³⁾。52例（58.4%）で根治術が施行され、血管内治療が40例と最多であった。直達術は侵襲が大きく、病変への到達は容易ではなく⁴⁾、12例と少数であった。保存的加療は33例（37.1%）であったが、再破裂率は16.1%と高く、積極的に根治術を検討すべきと考える。

本症例での治療に際しては、流入血管をDSAで視認できないこと、親動脈を温存させることに留意した。BAの穿通枝はその分布からparamedian arteryと、今回の責任血管であったCAに分類される。CA径は0.21から0.94（平均0.25）mm⁵⁾、本症例で使用したMGWは0.014 inch（0.355 mm）、MCの遠位外径は1.7 Fr（0.56 mm）であり、誘導困難となる可能性があった。高解像度のCone beam CTを用いることでCAの血管径やBAからの分岐角度を同定できた可能性がある⁶⁾。

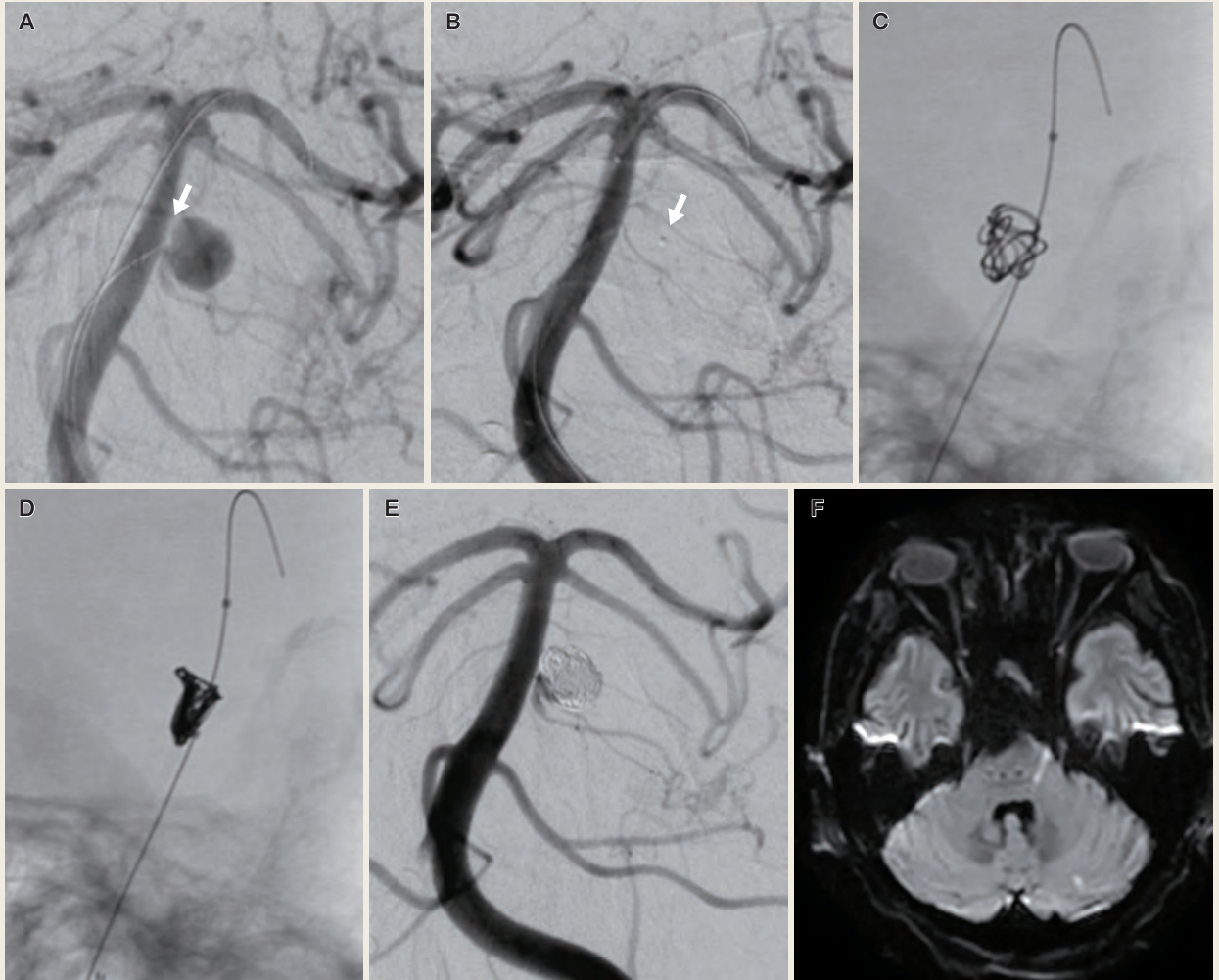


Fig. 2

Intraoperative findings. AP views before (A) and after (B) placement of a micro-catheter (arrow) in the aneurysm. Lateral views before (C) and after (D) removing the delivery-wire show an aneurysm collapsing with slight negative pressure. AP view (E) after the procedure shows complete obliteration of the aneurysm, but preservation of the LCA. MRI (F) demonstrates further slight brainstem infarction.

誘導できない場合の工夫としては、Marathon（日本メドトロニック）やDeFrictor（メディコスヒラタ）といったさらに小径のマイクロカテーテルの使用を検討する。コイルが留置できない場合には液体塞栓物質による流入動脈閉塞を行うこととなるが、穿通枝梗塞のリスクに留意する必要がある⁷⁾。動脈瘤に直接アプローチできない場合にはBAにフローダイバーターを留置する報告があるが、14%に脳幹梗塞を生じるため、積極的に検討すべきではないと考えられる⁸⁾。

SAHで発症したBAPAのうちAVMに関連した報告は4例（45%）あり、Table 1

Table 1 Summary of 5 cases of subarachnoid hemorrhage due to basilar perforator artery aneurysm with pontine arteriovenous malformation

	Age/sex	WFNS Grade	Fishre group	Aneurysm size (mm)	Aneurysm location	Aneurysm management	Aneurysm management	Preservation of perforator artery	Ischemic pontine stroke after procedure	Duration of follow-up (months)	mRS at discharge
Chen (2012)	28/F	III	NA	10	Middle	IVR	Intraaneurysmal coil embolization	+	-	18	2
Drazin (2012)	59/F	I	1	4	Distal	IVR + DS	Stent → Clipping by nasal approach	-	-	NA	0
Forbrig (2015)	71/M	V	4	4	Distal	IVR	Onyx embolization	-	+	60	3
Lockwood (2018)	75/F	IV	3	3	Distal	IVR	Intraaneurysmal coil embolization	+	NA	5	1
Present case (2022)	71/M	III	3	6	Middle	IVR	Intraaneurysmal coil embolization	+	+	1	3

[Abbreviation] F: Female, M: Male, WFNS: World Federation of Neurological Surgeons, AVM: Arteriovenous malformation, IVR: Interventional radiology, DS: Direct surgery, SAH: Subarachnoid hemorrhage, mRS: modified Rankin Scale, NA: Not available.

に示す^{7, 9-11)}。ChenらはAVMに関連したBAPAを初めて報告し、CAを温存したIACEを施行した⁹⁾。Drazinらは経鼻アプローチの前処置として、BAにEnterprise nitinol stent (ジョンソン・エンド・ジョンソン)を留置し、AVMへの流量低下を図った¹⁰⁾。Forbrigらは、Onyx (日本メドトロニック)でCAごと塞栓したが、術後に脳幹梗塞が出現した。親動脈の温存を戦略の検討に含めるべきと考えられる⁷⁾。Lockwoodらは3本のHydroSoft 3D coil (テルモ)でIACEを完遂した¹¹⁾。CAへのMCの誘導は困難と報告されているが⁴⁾、CAがAVMの流入動脈となっている場合には、本症例を含めて5例中4例で誘導が可能であり、IACEを治療の第1選択としてもよいと思われる。

IV. 結 語

AVNに関連したBAPAはこれまで4例のみの報告であり稀な病態であった。文献的にはIACEでの根治術が可能であるが、アプローチや親動脈の温存に留意する必要がある。

文献

- 1) Flores BC, et al: Management of intracranial aneurysms associated with arteriovenous malformations. *Neurosurg Focus* 37: E11, 2014
- 2) Aboukais R, et al: A dissecting aneurysm of a basilar perforating artery. *Neurochirurgie* 62: 263-5, 2016
- 3) Gardijan D, et al: Comparison between stenting and conservative management of posterior circulation perforator aneurysms: Systematic review and case series. *Neuroradiology* 63: 639-51, 2021
- 4) Hamel W, et al: Surgical treatment of a basilar perforator aneurysm not accessible to endovascular treatment. *Acta Neurochir (Wien)* 147: 1283-6, 2005
- 5) Komiyama M: Functional Anatomy of the Perforating Arteries of the Brain and Spinal Cord: From the Viewpoint of Segmental Structures of the Central Nervous System. *Japanese Journal of Neurosurgery* 24: 4-11, 2015
- 6) Fukuda K, et al: Target Embolization of Complex Vertebral Artery Dissecting Aneurysm with Endovascular Reconstructive Technique Using Cone-Beam Computed Tomography Angiography: Technical Note. *World Neurosurg* 158: 218-24, 2022
- 7) Forbrig R, et al: Ruptured basilar artery perforator aneurysms--treatment regimen and long-term follow-up in eight cases. *Neuroradiology* 58: 285-91, 2016
- 8) Phillips TJ, et al: Safety of the pipeline embolization device in treatment of posterior circulation aneurysms. *AJNR Am J Neuroradiol* 33: 1225-31, 2012
- 9) Chen L, et al: An endovascular approach to ruptured aneurysms of the circumferential branch of the basilar artery. *J Clin Neurosci* 19: 527-31, 2012
- 10) Drazin D, et al: Expanded endonasal approach for the clipping of a ruptured basilar aneurysm and feeding artery to a cerebellar arteriovenous malformation. *J Clin Neurosci* 19: 144-8, 2012
- 11) Lockwood J, et al: Endovascular Management of a Ruptured Basilar Perforator Artery Aneurysm Associated with a Pontine Arteriovenous Malformation: Case Report and Review of the Literature. *World Neurosurg* 116: 159-62, 2018