

〈脳神経外科速報 vol.33 no.6 e20233306c, 2023〉

破裂瘤同定に苦慮した多発脳動脈瘤を伴うくも膜下出血の1例

三原 陸¹⁾, 井手口 稔¹⁾, 金 景成¹⁾, 額 健太¹⁾, 尾関 友博¹⁾, 團 裕之¹⁾, 森田 明夫²⁾

1) 日本医科大学千葉北総病院脳神経外科 〒270-1694 千葉県印西市鎌苅 1715

2) 日本医科大学付属病院脳神経外科

Key Slide

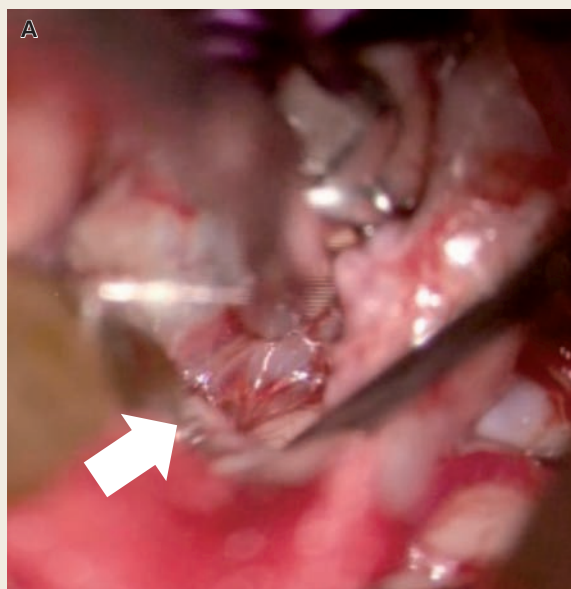


Fig. 4 Operative photograph of aneurysms

A : Left anterior cerebral aneurysm and its rupture point (arrow) .

A case of subarachnoid hemorrhage with multiple aneurysms in which identification of ruptured aneurysm was retarded

Riku MIHARA ¹⁾, Minoru IDEGUCHI ¹⁾, Kyongsong KIM ¹⁾, Kenta KOKETSU ¹⁾, Tomohiro OZEKI ¹⁾, Hiroyuki DAN ¹⁾, Akio MORITA ²⁾

1) Department of Neurological surgery, Chiba Hokusō Hospital, Nippon Medical School

2) Department of Neurological surgery, Nippon Medical School

Background: In patients with subarachnoid hemorrhage (SAH) and multiple aneurysms, treatment decision-making is decided by the SAH site and the location, shape and size of the ruptured aneurysm. Although vessel-wall enhancement on contrast-enhanced MRI scans helps to locate the ruptured aneurysm, such enhancement may lead to an incorrect diagnosis of the status of the aneurysms.

Case presentation: A 48-year-old woman with SAH and headache harbored four aneurysms detected on cerebral angiograms; they were located on the anterior wall of the right internal carotid artery (ICA), the left ICA, the anterior cerebral artery (ACA), and the middle cerebral artery. Because the wall of the right ICA aneurysm was strongly enhanced on contrast-enhanced MRI scans, we thought it was the rupture site although the SAH predominated on the left. Although the right ICA aneurysm was unruptured, it was clipped and removed. On the next day, we clipped the left ICA-, MCA- the ACA aneurysms. During operative findings, the ACA aneurysm was ruptured one. Vessel-wall

images led us to draw incorrect conclusions. Postoperatively the patient was placed on observation therapy and 76 days post-onset she was transferred to another hospital due to higher brain dysfunction. Pathologically, the resected unruptured right ICA aneurysm suggested inflammatory-cell infiltration as the possible cause of the strong enhancement.

Conclusion: Although there is a relationship between vessel-wall enhancement on imaging studies and aneurysmal rupture, such enhancement may be diagnostically false-positive. Therefore, in the presence of multiple aneurysms, diagnosticians must consider the SAH location and the site, size, and shape of the aneurysms when encountering vessel-wall enhancement on imaging studies

Key Words : Subarachnoid hemorrhage, vessel wall imaging, cerebral aneurysm

(Received January 25, 2023; Accepted April 4, 2023)

Correspondence to Riku MIHARA, M.D.,

Department of Neurological surgery, Chiba Hokusō Hospital, Nippon Medical School, 1715 Kamagari, Inzai-shi, Chiba, 270-1694, Japan

E-mail: s13-095mr [at] nms.ac.jp

I. 緒言

多発脳動脈瘤を伴うくも膜下出血において、破裂瘤の同定は治療方針決定に大変重要である。破裂瘤の同定は動脈瘤の大きさや形、blebの存在、くも膜下出血の分布などを参考にされるが、判断に迷うことも少なくない。造影MRIによるvessel wall imagingは、動脈硬化性病変や動脈解離の診断に使用されるが、動脈瘤壁の造影効果が破裂瘤同定に有用であるとの報告も散見される^{1, 2)}。今回、多発脳動脈瘤を伴うくも膜下出血において破裂瘤同定に苦慮した症例を経験したため報告する。

II. 症例

48歳女性。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：前日からの頭痛を主訴に近医を受診、頭部CTでくも膜下出血の診断となり当院へ搬送された。意識清明で症状は頭痛のみであった。頭部CTでくも膜下出血は脳底槽からシルビウス裂に及んでいたが、やや左優位であった（Fisher group 3）（Fig. 1A）。脳血管撮影では、右内頸動脈前壁に双瘤状の動脈瘤がみられ（Fig. 1B）、さらに左内頸動脈前壁（Fig. 1C）、左中大脳動脈（Fig. 1C）、左前大脳動脈（Fig. 1D）にも多発脳動脈瘤がみられたが、左前大脳動脈瘤は不整形でblebを伴っていた。

破裂瘤同定を目的に行った造影MRIによるvessel wall imagingでは、右内頸動脈瘤と左内頸動脈瘤、左前大脳動脈瘤に全周性の造影効果がみられた（Fig. 2A-C）。それぞれを下垂体茎の信号強度（Fig. 2D）と比をとると、右内頸動脈瘤が1.18、左前大脳動脈瘤は0.98、左内頸動脈瘤は0.58であった。動脈瘤の大きさや形状に加え、vessel wall imagingの造影効果の強さから破裂瘤は右内頸動脈前壁動脈瘤の可能性が高いと判断し、同日、開頭クリッピング術を行った。術中所見では、同脳動脈瘤に破裂した所見はみられず（Fig. 3A）、クリッピングを行い（Fig. 3B）、動脈瘤を切除し病理検体として提出した（Fig. 3C-F）。手術後、動脈瘤の形状から破裂瘤は左前大脳動脈瘤であると考え、手術翌日に左側の開頭クリッピング術を行った。術中所見では、左前大脳動脈瘤に出血痕がみられ破裂瘤と判断（Fig. 4A）、中大脳動脈瘤、内頸動脈瘤（Fig. 4B）の動脈瘤もクリッピングし手術を終了した。

初回手術7日後に脳血管撮影を行い、各動脈瘤の消失を確認した。保存療法を行い明らかな麻痺はないものの、遺残した高次脳機能障害のためリハビリテーション目的に第76病日に転院した（mRS 2）。切除した右内頸動脈瘤の病理所見では、外

側のより強く造影された脳動脈瘤壁に炎症細胞の浸潤および毛細血管の増生を認め、造影された原因と思われた (Fig. 3C-F).

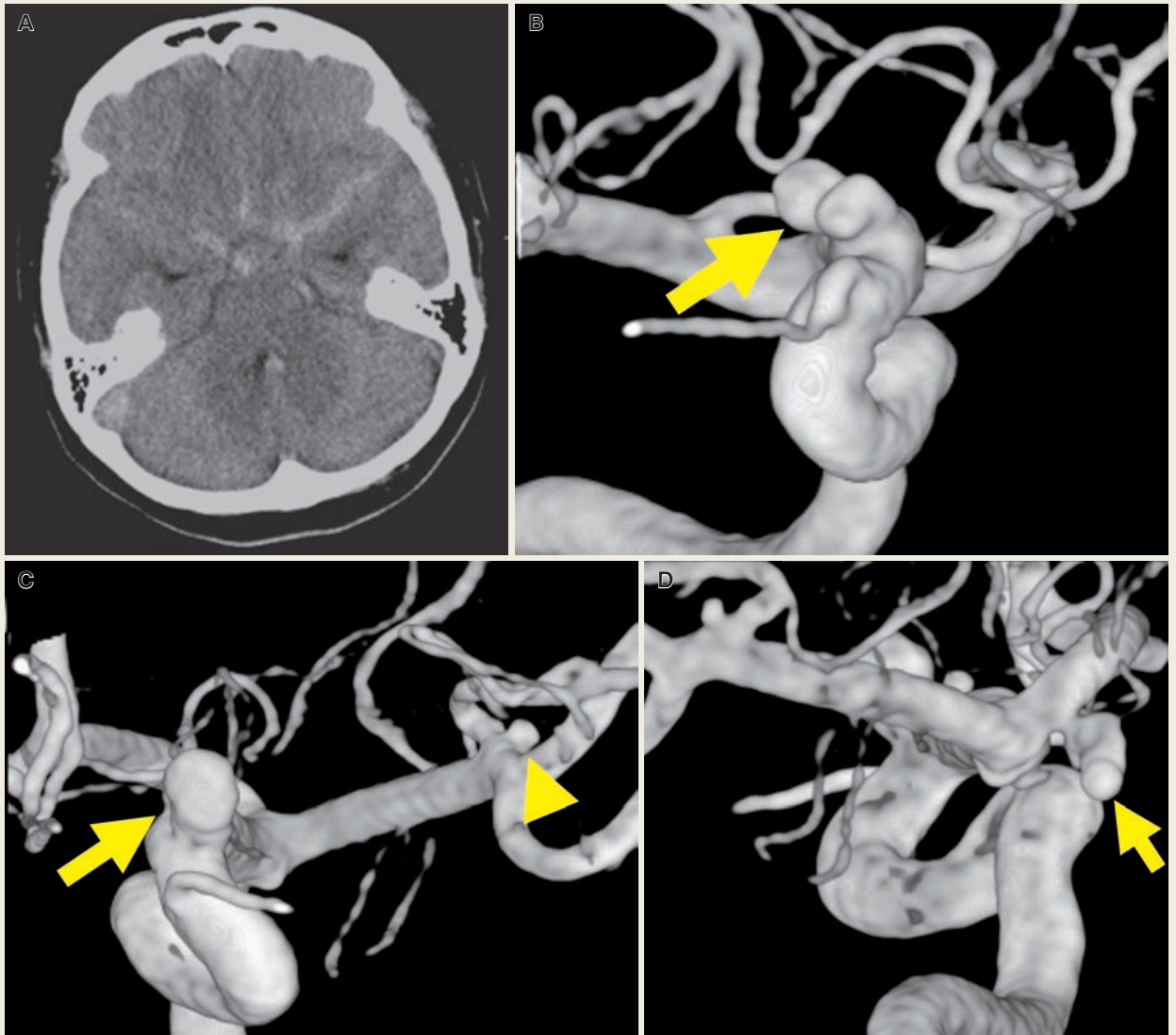


Fig. 1

A : Brain computed tomogram reveals subarachnoid hemorrhage, which is slight dominance of left side.

B : Right internal carotid artery (ICA) angiogram shows irregular shape aneurysms (arrow) on the dorsal portion of the ICA.

C : Left ICA angiogram demonstrates multiple aneurysms of ICA anterior wall (arrow) and middle cerebral artery aneurysm (arrow head).

D : Left ICA angiogram shows anterior cerebral artery aneurysm (arrow).

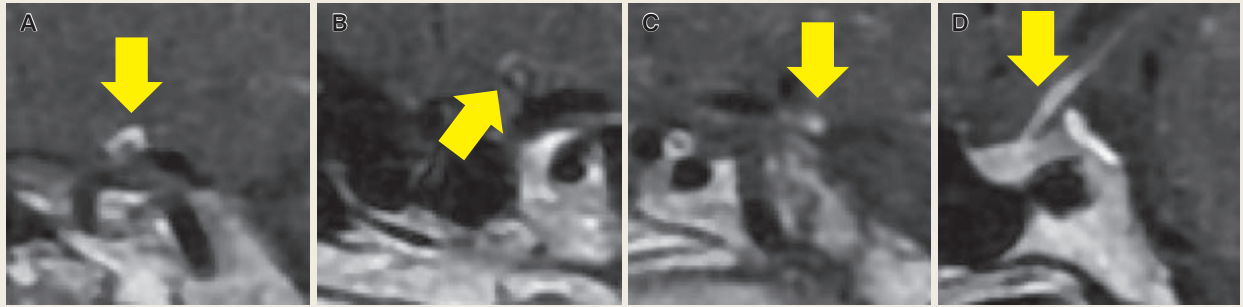


Fig. 2 Vessel wall imaging via gadolinium contrasted MRI

A : Right internal carotid artery (ICA) aneurysm (arrow) is strongly contrasted.

B : Left ICA aneurysm (arrow) is mild enhanced.

C : Left anterior cerebral artery aneurysm (arrows) is strongly enhanced.

D : Pituitary stalk is enhanced.

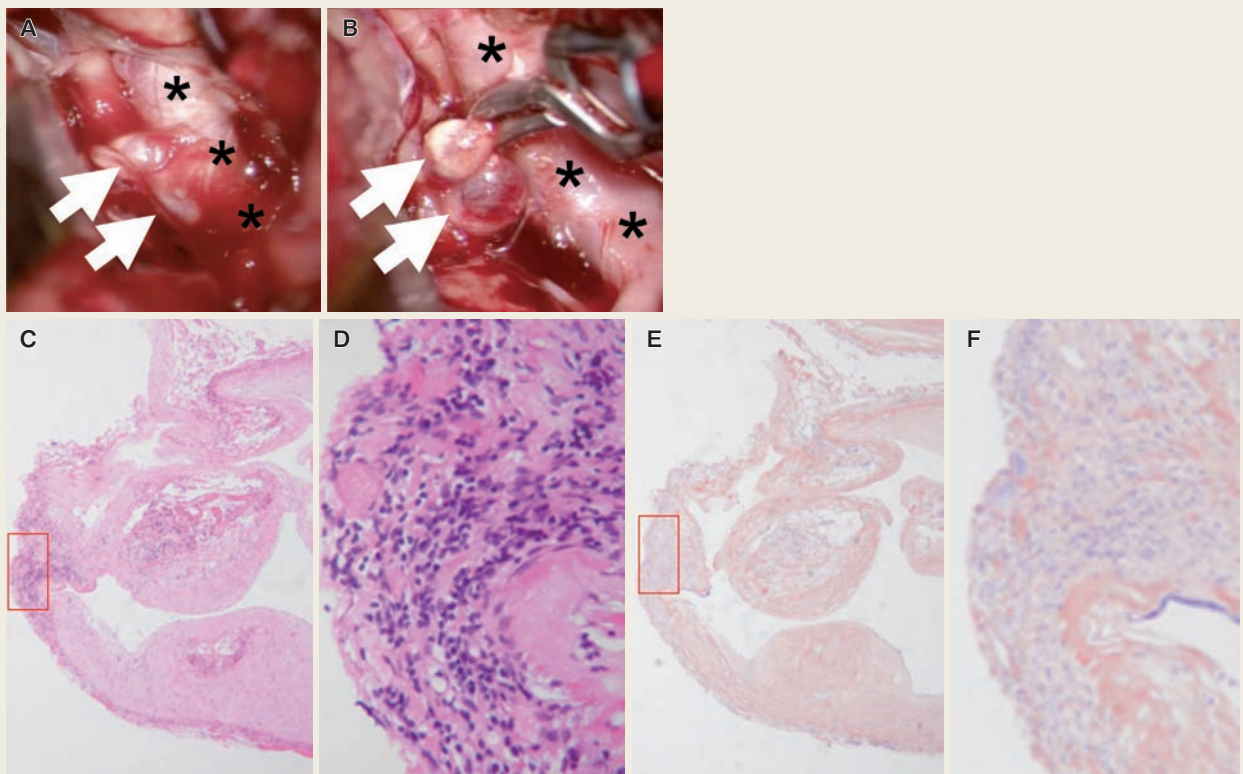


Fig. 3

A, B : Operative photograph of the right internal carotid artery (ICA) (*) aneurysm (arrow) before (A) and after (B) clipping. The aneurysm does not have any sign of rupture.

C-F : Pathological findings of this aneurysm of HE (C, D) and PTAH (E, F) stain.

Low ($\times 4$) (C, E) and high ($\times 40$ times) (D, F) magnification.

Inflammatory cell infiltration and congestion of the capillaries in the aneurysmal wall.

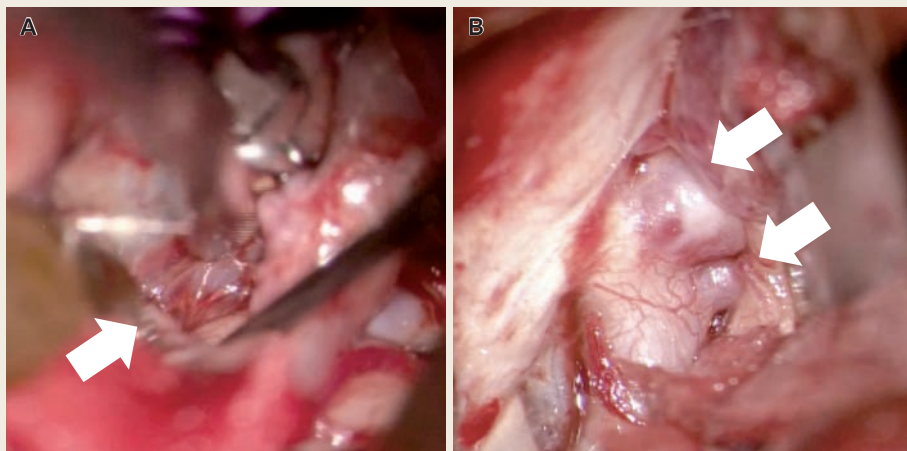


Fig. 4 Operative photograph of aneurysms

A : Left anterior cerebral aneurysm and its rupture point (arrow) .

B : Left internal carotid artery aneurysm (arrow) before clipping. It has no rupture sign.

III. 考 察

脳動脈瘤は日本人の5%に認められるが、その26～33%は複数の脳動脈瘤を有する³⁾。くも膜下出血患者に多発脳動脈瘤を認める場合、様々な方法で破裂瘤の同定が試みられる。頭部CTで明らかに出血の分布が偏っている場合は、同部周辺からの出血が疑われるが⁴⁾、その判断に迷うことも少なくない。Alexisらは動脈瘤のサイズと形状、動脈瘤の母血管から破裂瘤を予測するスコアリングを提唱しているが、特に不整形であることを重視している⁵⁾。Satoら³⁾は、開頭クリッピング術を行った多発脳動脈瘤を伴うくも膜下出血95例の検討から、動脈瘤サイズと形状、動脈瘤のアスペクト比（動脈瘤の奥行き／入口の幅）が破裂瘤の予測因子であり、なかでもアスペクト比が最も破裂瘤に関係していたと報告している。一方、Shojimaら⁶⁾はくも膜下出血を発症した多発脳動脈瘤25例62個を調べたところ、動脈瘤のサイズが最も破裂と関連していたと報告した。

Vessel wall imagingは脳神経外科領域において、1990年代に頸部頸動脈内腔の狭窄を正しく評価できることや⁸⁾、頭蓋内椎骨動脈と内頸動脈壁の造影強度が加齢と関係していることが報告された⁹⁾。脳動脈瘤の定性評価においては、多発脳動脈瘤3例を含むくも膜下出血5例において、vessel wall imagingにより未破裂瘤は造影されず、すべての破裂瘤が造影されたとの報告¹⁰⁾がみられる一方で、くも膜下出血13例中4例で増強効果がみられなかったとの報告もみられる¹¹⁾。事実、頭痛と動眼神経麻痺で発症した多発脳動脈瘤（左中大脳動脈と左内頸動脈後交通動脈分岐部の動脈瘤）のくも膜下出血患者でvessel wall imagingを行ったところ、左

中大脳動脈瘤のみに造影効果がみられたが、術中所見では本動脈瘤は未破裂であり、左内頸動脈瘤が破裂瘤であったとの報告もみられる¹²⁾。また、破裂瘤 61 例と未破裂脳動脈瘤 56 例の検討では、vessel wall imaging により破裂瘤の 73.8%、未破裂瘤の 4.8%に（脈絡叢や静脈叢と同程度の）強い造影効果がみられ、強い造影効果が破裂瘤であるという感度は 73.8%、特異度 95.2%であったとの報告がある¹⁾。

その背景には、未破裂瘤であっても増大傾向である場合、vessel wall imaging により造影効果を認めるためとされている¹⁴⁾。動脈瘤造影の信号強度を下垂体茎と比をとることで定量した報告¹⁵⁾では、破裂瘤、増大傾向のある未破裂瘤、増大傾向のない未破裂瘤では、それぞれの信号強度の比の平均が 0.83, 0.54, 0.34 であり、増大傾向のない瘤であるカットオフ値は 0.39 であった。本法に従うと、本症例では造影された 3 つの動脈瘤はいずれも未破裂瘤であるとの判断は難しかった。現状では、破裂瘤と増大傾向のある瘤との違いに関する検討はいまだなされておらず、事実、本症例での右内頸動脈瘤の病理所見では炎症細胞浸潤が認められ、増大傾向を示す瘤であった可能性が示唆され、vessel wall imaging による両者の鑑別は難しかったものと考えられた。

造影効果の局在に関して、局所的な造影効果を示した動脈瘤 3 例と、全周性の造影効果を認めた 1 例の病理を検討した報告によると¹³⁾、全周性の造影効果を認めた動脈瘤では新生血管や炎症細胞の豊富な浸潤がみられたのに対し、局所的な造影効果は瘤の破裂点での血栓をみていたものとされ、局所的な造影効果が破裂点と関係している可能性が示唆されている。今回の症例では、強い造影効果を認めた 2 つの動脈瘤はいずれも全周性の造影効果であり、造影効果の性状から破裂瘤を推定できるのか、については今後の課題と思われる。

本症例では、右内頸動脈瘤は双瘤状で比較的大きかったが、左前大脳動脈瘤が不整形であり血腫が左に厚かったことなどから、当初から左前大脳動脈瘤を破裂瘤と判断すべきであったのかもしれない。また、侵襲性を考慮し、血管内治療を優先的に行う選択肢もあったと思われる。いずれにせよ、本症例のように多発脳動脈瘤患者のくも膜下出血症例で破裂瘤を判断する場合、vessel wall imaging は 1 つの情報と位置づけ、様々な情報により総合的に判断する必要があると思われた。

IV. 結 論

くも膜下出血での破裂瘤同定は、造影 MRI による vessel wall imaging では偽陽性もあり得るため、動脈瘤の大きさや形状、出血部位など様々な情報により、総合的に判断すべきであると考えられた。

文献

- 1) Nagahata S, et al: Wall Enhancement of the Intracranial Aneurysms Revealed by Magnetic Resonance Vessel Wall Imaging Using Three-Dimensional Turbo Spin-Echo Sequence with Motion-Sensitized Driven-Equilibrium: A Sign of Ruptured Aneurysm? *Clin Neuroradiol* 26: 277-83, 2016
- 2) Larsen N, et al: Vessel Wall Enhancement in Unruptured Intracranial Aneurysms: An Indicator for Higher Risk of Rupture? High-Resolution MR Imaging and Correlated Histologic Findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 39: 1617-21, 2018
- 3) Sato H, et al: Clinical Characteristics of Ruptured Intracranial Aneurysm in Patients with Multiple Intracranial Aneurysms. *World Neurosurg* 149: e935-41, 2021
- 4) Nehls DG, et al: Multiple intracranial aneurysms: determining the site of rupture. *J Neurosurg* 63: 342-8, 1985
- 5) Hadjiathanasiou A, et al: Multiple aneurysms in subarachnoid hemorrhage - identification of the ruptured aneurysm, when the bleeding pattern is not self-explanatory - development of a novel prediction score. *BMC Neurol* 20: 70, 2020
- 6) Shojima M, et al: Size is the Most Important Predictor of Aneurysm Rupture Among Multiple Cerebral Aneurysms: Post Hoc Subgroup Analysis of Unruptured Cerebral Aneurysm Study Japan. *Neurosurgery* 82: 864-9, 2018
- 7) Herfkens RJ, et al: Nuclear magnetic resonance imaging of atherosclerotic disease. *Radiology* 148: 161-6, 1983
- 8) Edelman RR, et al: Extracranial carotid arteries: evaluation with "black blood" MR angiography. *Radiology* 177: 45-50, 1990
- 9) Aoki S, et al: Enhancement of the intracranial arterial wall at MR imaging: relationship to cerebral atherosclerosis. *Radiology* 194: 477-81, 1995
- 10) Matouk CC, et al: Vessel wall magnetic resonance imaging identifies the site of rupture in patients with multiple intracranial aneurysms: proof of principle. *Neurosurgery* 72: 492-6; discussion 496, 2013
- 11) Orning JL, et al: Accuracy in Identifying the Source of Subarachnoid Hemorrhage in the Setting of Multiple Intracranial Aneurysms. *Neurosurgery* 83: 62-8, 2018
- 12) Zolnourian A, et al: Vessel Wall Imaging After Subarachnoid Hemorrhage in Patients with Multiple Intracranial Aneurysms: A Cautionary Case. *World Neurosurg* 127: 414-7, 2019
- 13) Matsushige T, et al: Focal Aneurysm Wall Enhancement on Magnetic Resonance Imaging Indicates Intraluminal Thrombus and the Rupture Point. *World Neurosurg* 127: e578-84, 2019
- 14) Omodaka S, et al: Circumferential Wall Enhancement on Magnetic Resonance Imaging is Useful to Identify Rupture Site in Patients with Multiple Cerebral Aneurysms. *Neurosurgery* 82: 638-44, 2018
- 15) Omodaka S, et al: Circumferential wall enhancement in evolving intracranial aneurysms on magnetic resonance vessel wall imaging. *J Neurosurg*: 1-7, 2018