

〈脳神経外科速報 vol.32 no.2 e20223202d, 2022〉

二重起始後下小脳動脈末梢部 破裂脳動脈瘤に対し 血管内治療を施行した1例

木村尚平¹⁾，宇津木聡²⁾，溝上康治²⁾

1) 脳神経外科東横浜病院 〒221-0863 神奈川県横浜市神奈川区羽沢町 888

2) 湘南藤沢徳洲会病院脳神経外科

Key Slide

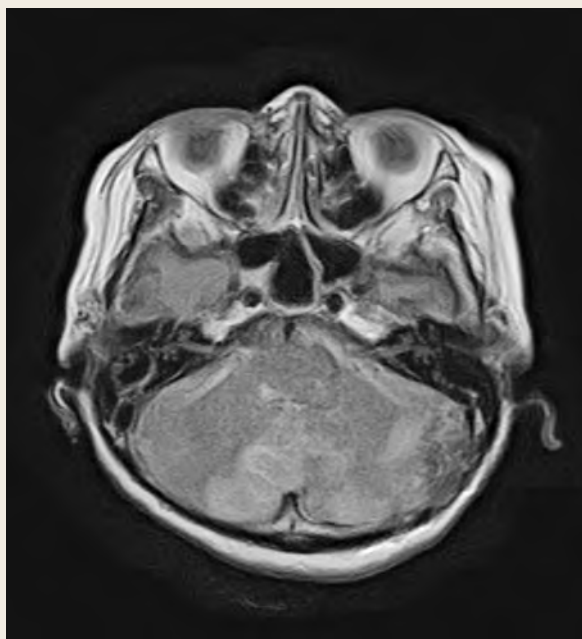


Fig. 5

FLAIR image of postoperative magnetic resonance imaging showed high signal lesions in both sides of the cerebellum, suggesting fresh infarcts due to distal emboli of glue during the procedure.

A case of neuroendovascular therapy for a ruptured aneurysm of distal double origin posterior inferior cerebellar artery

Shohei KIMURA ¹⁾, Satoshi UTSUKI ²⁾, Kouji MIZOKAMI ²⁾

1) Department of Neurosurgery, No Shinkeigeka Higashi Yokohama Hospital

2) Department of Neurosurgery, Shonanfujisawa Tokusyukai Hospital

Objective: We reported a rare case of ruptured posterior inferior cerebellar artery (PICA) aneurysm with double origin of the PICA (DOPICA).

Case Presentations: An eighty-years old woman presented with neck pain and loss of consciousness. CT scan depicted subarachnoid hemorrhage in the posterior fossa and hematoma in the fourth ventricle. 3DCT Angiography revealed an aneurysm on an upper non-dominant PICA proximal to the union. Internal trapping of the aneurysm itself and proximal upper PICA was performed. The aneurysm was completely obliterated with a coil and glue.

Conclusion: Endovascular trapping of one channel was effective as a treatment of a PICA aneurysm associated with DOPICA.

Key Words : double origin of the posterior inferior cerebellar artery, Neuroendovascular therapy, Distal posterior inferior cerebellar artery aneurysms, Parent artery occlusion, Anomaly

(Received May 19, 2021; Accepted October 26, 2021)

Correspondence to Shohei KIMURA, M.D.,
Department of Neurosurgery, No Shinkeigeka Higashi
Yokohama Hospital, 888 Hazawa-cho, Kanagawa-ku,
Yokohama-shi, Kanagawa, 221-0863, Japan
E-mail: Osho0422 [at] yahoo.co.jp

I. 緒 言

後頭蓋窩の血管は variation が豊富であり，後下小脳動脈（posterior inferior cerebellar artery : PICA）の variation には，窓形成，AICA-PICA 共通幹，PICA end, PICA extradural origin, 血管低形成や欠損，PICA communicating artery などがある¹⁾．二重起始後下小脳動脈（double origin posterior inferior cerebellar artery : DOPICA）も稀な PICA の variation の 1 つであり，動脈瘤が発生しやすいことが報告されている^{2,5)}．今回我々は，DOPICA の末梢に発生した動脈瘤破裂によるくも膜下出血に対し，血管内治療を行った症例を経験したので文献的考察を加え報告する．

II. 症例提示

80 歳の女性，来院当日の朝，起床後に頸部痛を訴えた後に反応が悪くなり，家族が救急要請し当院搬送となった．既往歴として，詳細不明ではあるが後頭蓋窩髄膜腫に対し開頭腫瘍摘出を行ったことがあるほかは，家族歴も含め特記事項はなかった．初診時の意識レベルは Japan Coma Scale (JCS) 10, Glasgow Coma Scale (GCS) E3V5M6 であった．

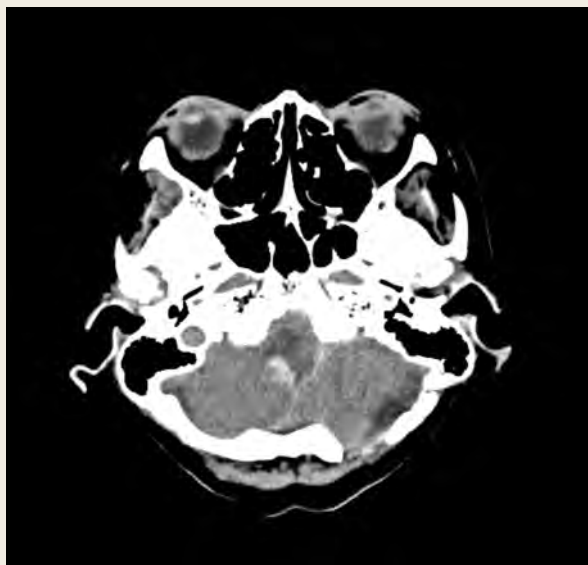


Fig. 1

CT scan showed a subarachnoid hemorrhage in the posterior fossa and a hematoma in the fourth ventricle, and surgical scars of craniotomy by left lateral suboccipital approach.

神経学的には，眼球運動障害や眼振，運動麻痺や協調運動障害などは認められなかった．頭部 CT にて脳底槽，側脳室，第三脳室，第四脳室に血腫を伴う Fisher group 3 のくも膜下出血を認めた (Fig. 1)． Hunt & Kosnik grade 3, WFNS grade 2 のくも膜下出血の診断で，引き続き 3DCTA を施行した． 3DCTA の元画像にて血腫が比較的厚い部位に約 2 mm の脳動脈瘤を認めた (Fig. 2)． PICA は頭蓋外椎骨動脈 (V3 segment) より分岐する PICA (lower PICA) と頭蓋内椎骨動脈 (V4 segment) より分岐する PICA (upper PICA) の二重起始となっており， lower PICA が dominant となっていた． lower PICA と upper PICA は PICA の tonsillomedullary segment で合流していた． 動脈瘤は嚢状であり，両 PICA 合流部手前の upper PICA に存在していた (Fig. 3)．

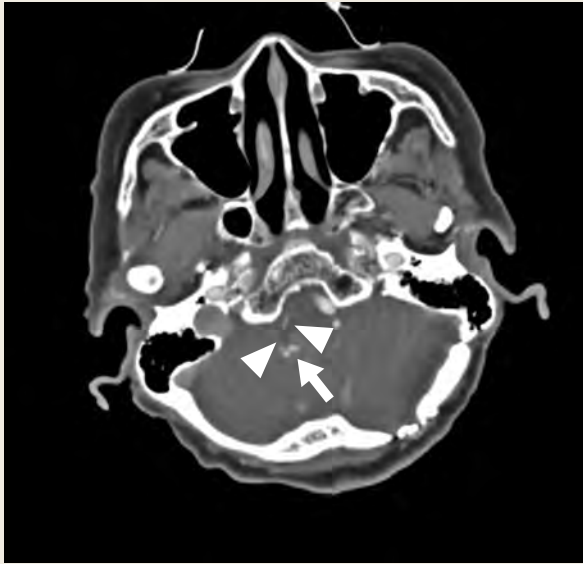


Fig. 2

Contrast-enhanced CT scan showed an aneurysm in the thick hematoma dorsal to the medulla.

Arrow : aneurysm
Arrowhead : right PICA

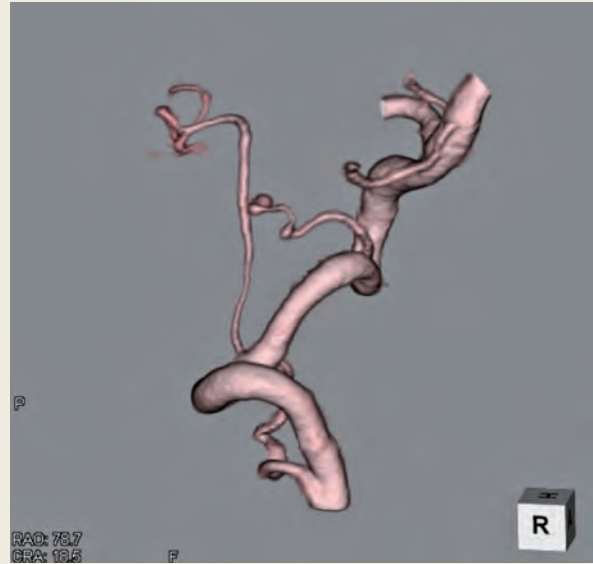


Fig. 3

3D reconstruction of contrast enhanced CT scan showed the right posterior inferior cerebellar artery (PICA), which consisted of two channels, and indicating a double origin PICA (DOPICA) and an aneurysm on the distal site of non-dominant upper PICA.

高齢であること、後頭蓋窩開頭術の既往があり癒着による脳の損傷の可能性が一般と比べ高いこと、血管破格の存在により手術中に disorientation となる可能性があることから、開頭手術ではなく血管内治療を行う方針とした。急性水頭症を伴っていたため、入院日（第1病日）に局所麻酔下で右側脳室前角への脳室ドレナージ術を施行し、第2病日に血管内治療を行った。プロポフォールでの鎮静下に治療を行った。Aortic Arch type 3であったため、右上腕動脈アプローチとした。破裂例であることから当初ヘパリン 1,000 単位の全身投与を行い、6 Fr FUBUKI Dilator kit 90 cm AN（朝日インテック）を右 vertebral artery（VA）V2 segment に誘導留置し、4.2 Fr FUBUKI（朝日インテック）／Excelsior SL-10 45°（日本ストライカー）／ASAHI CHIKAI 14（朝日インテック）のシステムで 4.2 Fr FUBUKI を右 PICA の頭側ルート分岐部手前まで誘導した。引き続き SL-10 を頭側 PICA に誘導しようとするが困難で、頭側 PICA 起始部の遠位 VA に SHOURYU HR 7×7 mm（カネカメディックス）を誘導、拡張させ、これを壁とすることで誘導することが可能となった。

この段階で ACT200 程度を目標に、さらにヘパリン 3,000 単位を追加投与した。PICA の屈曲蛇行のため動脈瘤まで SL-10 を誘導することができず、動脈瘤の存在

する PICA が dominant ではなく、またこの PICA からの穿通枝も認めなかったため、N-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA) (ビー・ブラウンエースクラップ) を用いて母血管ごと動脈瘤を閉塞することとした。血流低下 (NBCA の遠位への飛散予防) を目的として ED コイル 1.5 mm × 3 cm (カネカメディックス) を母血管に 1 本留置した後、33% NBCA を用いて母血管ごと動脈瘤を閉塞させることができた (Fig. 4A ~ D)。

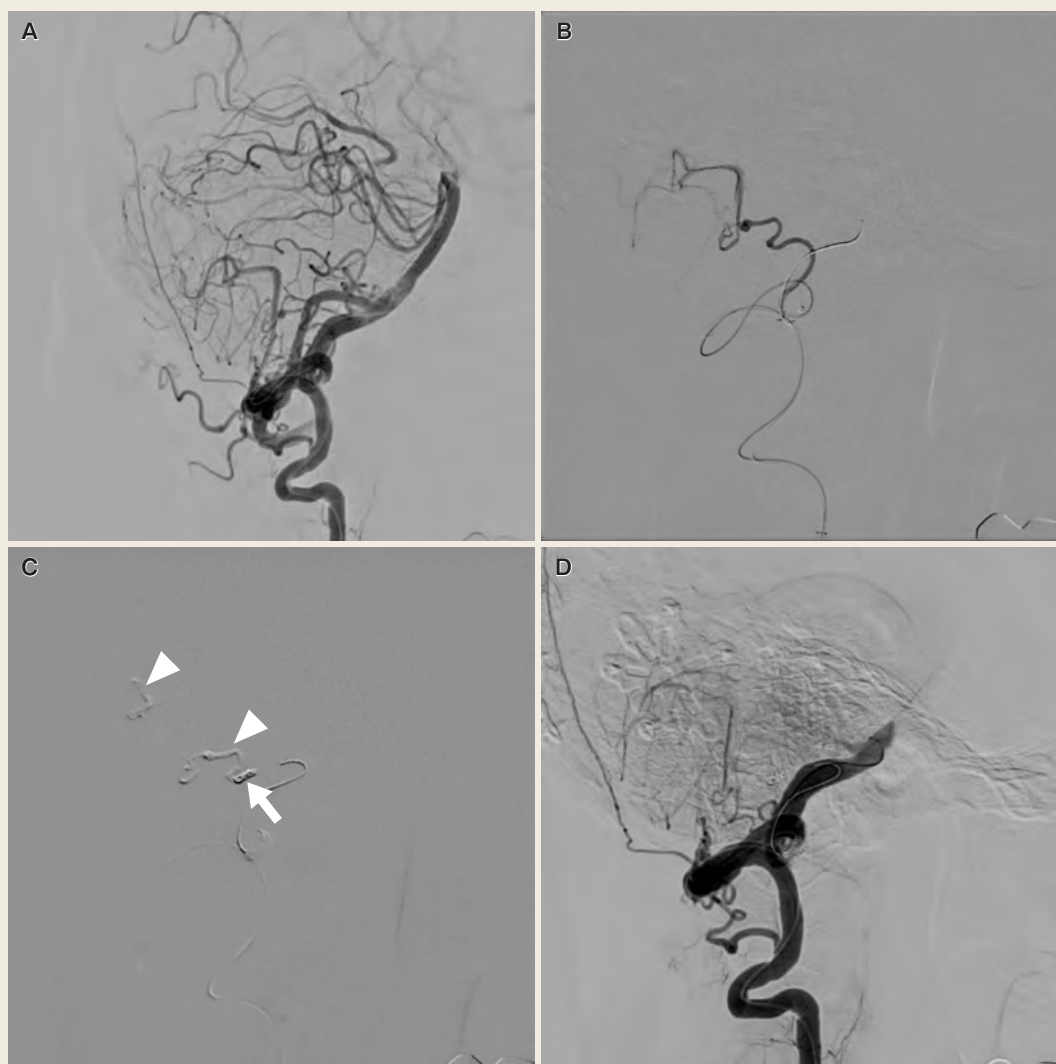


Fig. 4

- A** : Lateral view of a pre embolization angiogram from the right vertebral artery.
B : Lateral view of a superselective angiogram from the upper PICA showed an aneurysm, and the upper PICA converged with the lower PICA and formed the common PICA.
C : NBCA casts and a coil used for embolization of the upper PICA and the aneurysm.
 Arrow : coil.
 Arrowhead : NBCA casts.
D : Lateral view of a post embolization angiogram from the right vertebral artery.

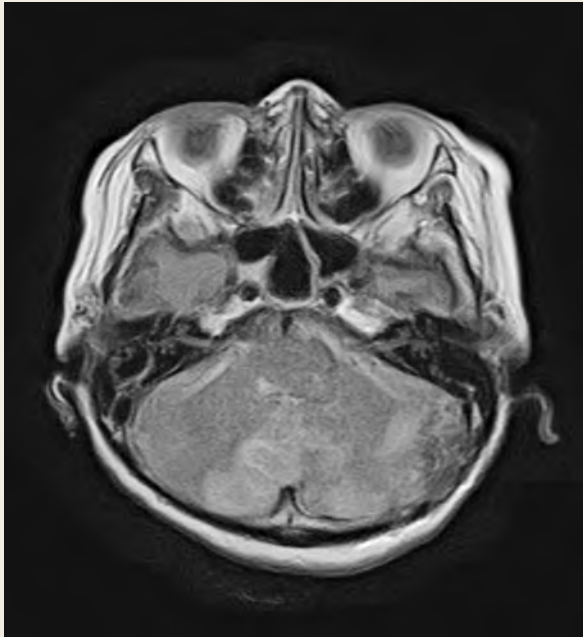


Fig. 5

FLAIR image of postoperative magnetic resonance imaging showed high signal lesions in both sides of the cerebellum, suggesting fresh infarcts due to distal emboli of glue during the procedure.

しかし実際には2本のPICA合流部の遠位にNBCAの飛散を起こし、第3病日に施行した頭部MRI (FLAIR)にて両側小脳半球に脳梗塞を確認した (Fig. 5)。左右PICAは右がdominantとなっており、そのため梗塞は左小脳半球にも及んだものと考えられる。また延髄には脳梗塞は認めなかった。

術後はJCS 3程度の意識障害が遷延した。第10病日にJCS 20へ意識レベルが低下したため血管造影を疑い血管撮影を施行したところ左中大脳動脈にびまん性に血管攣縮の所見を認め、左M1にマイクロカテーテルを誘導してエリル® 30 mgの動注を行った。画像上の血管攣縮は改善したものの、意識レベルの著明な改善はなく、JCS 2桁の意識障害が遷延し、誤嚥性肺炎を併発したため挿管、呼吸器管理を行い気管切開術も行った。最終的にmRS 5にて療養型病院へ転院となった。

III. 考 察

DOPICAの発生は稀であり、0.36～1.5%の頻度と報告されている^{6,7)}。DOPICAの報告のほとんどが動脈瘤を伴ったもので、動脈瘤を伴わないDOPICAの報告が少ないため、DOPICAにおける動脈瘤の発生率がどの程度なのかは不明であるが、血管の先天異常は動脈瘤の形成の素因になる可能性があり、Camposらは、脳底動脈の窓形成があると35.5%に動脈瘤が存在することを報告⁸⁾したことから、DOPICAにも動脈瘤を伴うことが多いと推察される。

LasjauniasらによるとDOPICAはlateral spinal artery (LSA)とPICAの間の発生学的遺残でありlower PICAはLSAが遺残し発達したものである⁹⁾。LSAは通常硬膜内PICAかVAから起始し、副神経脊髄枝に沿って尾側へ走行し各体節レベル、特にC2で様々な血管と交通をもってPICA、VAの多彩な血管構築にかかわる。Upper PICAが真のPICAであり、upper PICAが延髄穿通枝を持つとされている⁹⁾。

DOPICAに発生した囊状動脈瘤は渉猟し得た限り、自験例を含め7例の報告のみであった^{2,4,10)}。PICAは解剖的な特徴によりanterior medullary segment (AMS), lateral medullary segment (LMS), tonsillomedullary segment (TMS),

Table 1

Author	Year	Age, Sex	Presentation	Origin of lower PICA	Dominancy of PICA	Location of convergence of both PICAs	Location of aneurysm	Treatment	Complication
Pasco A, et al 4)	2002	36, M	SAH	V4	lower	LMS	upper PICA near convergence	trapping with glue	medullary infarction
Horiguchi K, et al 5)	2008	44, M	SAH	V3	upper	LMS	convergence of both PICAs	aneurysm coil embolization	none
Vora N, et al 5)	2009	57, M	SAH	V4	same	AMS	convergence of both PICAs	trapping with coil and stent placement	none
Lee SH, et al 3)	2011	65, F	incidental	V4	lower	AMS	VA-lower PICA bifurcation	coil embolization of the aneurysm and lower PICA origin	none
Koh JS, et al 10)	2012	56, F	SAH	V4	lower	LMS	post convergence PICA	trapping with clips	none
Uchiyama T, et al 2)	2015	66, F	SAH	V4	upper	AMS	VA-upper PICA bifurcation	aneurysm coil embolization → trapping with clips	none
Present case		80, F	SAH	V4	lower	TMS	upper PICA near convergence	trapping with coil and glue	cerebellar infarction

SAH : subarachnoid hemorrhage. PICA : posterior inferior cerebellar artery. AMS : anterior medullary segment. LMS : lateral medullary segment. TMS : tonsillomedullary segment. VA : vertebral artery.

Summary of Double Origin of the Posterior Inferior Cerebellar Artery aneurysms

televelotonsillar segment (TSS), cortical segment (CS) の5つの segment に分類される^{1,4)}. この分類に従うと, lower PICA と upper PICA の合流部分は, 7例中3例で AMS であり, 3例が LMS で, 本例のみが TMS に存在していた. 動脈瘤は VA と PICA 分岐部が2例, lower PICA と upper PICA 合流部が3例, 合流部より少し proximal の血管の分岐と関係ない部分にみられたのが2例であった. また, upper PICA が dominant となっているのが2例であり, lower PICA が dominant となっているのが本例を含め4例, どちらもが同等の血管径であったものが1例であった. 本例を除く6例では, dominant となっている PICA に接し動脈瘤が形成されていたが, 本例のみ non dominant side の upper PICA の遠位 (PICA 合流部手前) に嚢状動脈瘤を認めた (Table 1). PICA に関連した動脈瘤は VA と PICA 分岐部と medullary segment に多いことが報告されている¹¹⁾. DOPICA に伴う動脈瘤も本例を除けば VA と PICA 分岐部, もしくは medullary segment に存在することから同様の傾向がみられた. そういう意味から本例は, DOPICA に伴う動脈瘤自体が稀であるが, その中でも比較的末梢にできたさらに稀な動脈瘤であると言える.

また, DOPICA に VA や PICA の解離性動脈瘤が発生しやすいことが報告され

ている¹²⁾。VA や upper PICA が環椎後頭骨付近で頭蓋外 lower PICA にアンカーされていることで、VA や PICA に伸展、圧迫などの余分なストレスがかかり、血管の解離を引き起こすのではないかとされている¹²⁾。これらの報告は、動脈瘤の形状が紡錘状であったことから解離性動脈瘤と推測されているだけで、病理組織学的に解明されているわけではない。DOPICA に伴う囊状動脈瘤の報告でもその発生原因として解離を疑っている報告もある^{2,4)}。また、末梢性の PICA 動脈瘤は解離性動脈瘤が多いとの報告もあるが、これも病理組織学的に解明されたものではない。これは、動脈瘤の切除自体が困難であることによるものだが、渡邊らは、PICA の囊状の末梢性動脈瘤を外科的治療の際に切除し、その動脈瘤が病理組織学的に解離でない動脈瘤であることを報告している¹³⁾。今後、PICA 末梢性動脈瘤の病理組織学的検討が増えれば、解明されていくことであろう。

PICA に発生する動脈瘤はどの部位にも発生し、特に走行上の屈曲の強い部位に多く、血管の分岐部によらず発生し得る¹⁴⁾ ことから、発生のメカニズムに hemodynamic stress が関与するとされる。ただ、本症例において動脈瘤がみられたのは dominant ではない血管であり、血管の分岐とは関係なく、比較的直線部分であることから、瘤形成の原因として血管解離が関与していたかもしれない。また、これまで開頭術に伴う PICA 動脈瘤の発生に関しまとまった報告はないが、本症例では、詳細は不明であるが後頭蓋窩開頭術既往があり、これを契機として発生した動脈瘤である可能性も否定はできない。

DOPICA に発生した囊状動脈瘤に対する治療に関しては様々な報告があるが、過去に報告された6例中4例においてコイルを用いて動脈瘤ごと母血管閉塞を行っている。いずれにおいても他方の PICA から末梢の PICA の血流は保たれていた。ただし Pasco らは動脈瘤閉塞のために、NBCA で upper PICA を母血管ごと塞栓した際に外側延髄梗塞を起こしたことを報告している⁴⁾。Upper PICA が延髄穿通枝を持つためと考えられる。VA、PICA、脳底動脈、AICA はそれぞれ密な吻合を形成するので、DOPICA に伴う動脈瘤でコイルを用いて片方の動脈瘤ごと PICA の閉塞を行うことは、比較的安全な治療なのかもしれない^{2,5)}。

我々の症例でも、upper PICA の母血管閉塞をコイルと NBCA で行い、延髄梗塞を起こすことはなかったが、NBCA を両 PICA 合流部遠位に飛散させ小脳梗塞を起こしてしまった。これまでの報告での DOPICA に伴う解離性動脈瘤のコイルによる母血管閉塞ではトラブルがなかったことから、本症例では NBCA を使用したことが問題であったと考える。コイルのみで治療が可能である場合、可能な限り NBCA など液体塞栓物質を使用することを回避しなければならない。

本症例では、瘤から PICA 合流部まで若干距離があることから、コイルで flow を落とせば合流部遠位に NBCA を migration させる可能性を減らせるであろうという考えから NBCA を用いることで完全閉塞を意図したが、頭側 PICA 起始部の VA を balloon で遮断した状態で椎骨動脈撮影を行い、尾側 PICA から瘤の描出がなければコイルによる近位閉塞のみで経過をみるという方法が選択できた可能性はある。近位閉塞のみでは不十分な場合、尾側 PICA から頭側 PICA までマイクロカテーテルが誘導可能な形態であったならこれを利用して追加治療を行うという方法もあったかもしれないが、本症例では尾側 PICA の屈曲蛇行が強く、治療に利用することはできなかった。また、当院では当時 ONYX（日本メドトロニック）は使用できない状況であり、適応外使用ではあるが ONYX を用いた母血管閉塞ができた可能性もある。SL-10 ではなく Marathon（日本メドトロニック）などの先端細径マイクロカテーテルを使用することで瘤まで到達できた可能性もある。また、慣れた術者による開頭術も当然選択肢として考えられる。

IV. 結 語

DOPICA は稀な変異ではあるが、頭蓋内囊状動脈瘤や解離性動脈瘤を伴うことがある。治療として、血管内治療での母血管閉塞が選択肢の1つとなり得ると考えられた。

文献

- 1) Lister JR et al: Microsurgical anatomy of the posterior inferior cerebellar artery. *Neurosurgery* 10: 170-99, 1982
- 2) Uchiyama T, et al: Treatment of a ruptured aneurysm involved in a double origin of the posterior inferior cerebellar artery. *Interv Neuroradiol* 21, 451-5, 2015
- 3) Lee SH, et al: Successful endosaccular coiling after a balloon occlusion test of the caudal channel of a double origin of the posterior inferior cerebellar artery originating from the aneurysm neck. *Interv Neuroradiol* 17: 183-7, 2011
- 4) Pasco A, et al: Ruptured aneurysm on a double origin of the posterior inferior cerebellar artery: a pathological entity in an anatomical variation. Report of two cases and review of the literature. *J Neurosurg* 96: 127-31, 2002
- 5) Vora N, et al: Retrograde back-coiling technique for a ruptured aneurysm of a double-origin posterior inferior cerebellar artery. *J Neuroimaging* 19: 65-7, 2009
- 6) Lesley WS, et al: Double origin of the posterior inferior cerebellar artery: association with intracranial aneurysm on catheter angiography. *AJR Am J Roentgenol* 189: 893-7, 2007
- 7) Stopford JS: The Arteries of the Pons and Medulla Oblongata. *J Anat Physiol* 50: 131-64, 1916
- 8) Campos J, et al: Saccular aneurysms in basilar artery fenestration. *AJNR Am J Neuroradiol* 8: 233-6, 1987
- 9) Lasjaunias P, et al: The lateral spinal artery of the upper cervical spinal cord. Anatomy, normal variations, and angiographic aspects. *J Neurosurg* 63: 235-41, 1985
- 10) Koh JS, et al: Dissecting aneurysm associated with a double origin of the posterior inferior cerebellar artery causing subarachnoid hemorrhage. *J Korean Neurosurg Soc* 51: 40-3, 2012
- 11) Hudgins RJ, et al: Aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery. A clinical and anatomical analysis. *J Neurosurg* 58: 381-7, 1983
- 12) Kwon BJ, et al: Double origin of the posteroinferior cerebellar artery: angiographic anatomy and endovascular treatment of concurrent vertebrobasilar dissection. *Neurosurgery* 61: 242-7, 2007
- 13) 渡邊瑞也ほか: 破裂末梢性後下小脳動脈瘤(cortical segment)の2例. *Neurological Surgery 脳神経外科* 47: 673-81, 2019
- 14) Horiuchi T, et al: Characteristics of distal posteroinferior cerebellar artery aneurysms. *Neurosurgery* 53: 589-95, 2003
- 15) 堀口健太郎ほか: 頭蓋内外より起始する後下小脳動脈に生じた動脈瘤に対する血管内治療の1例. *脳卒中* 30: 521-5, 2008