

両側対称性末梢性前大脳動脈瘤の1例

荒木 忍*、鷺見佳泰、和田啓二**、中川原讓二
中村順一、末松克美***

Bilateral Distal Anterior Cerebral Artery Aneurysms in a Mirror Position

Shinobu ARAKI*, Yoshiyasu SUMI, Keiji WADA**, Jyoji NAKAGAWARA,
Jun-ichi NAKAMURA, Katsumi SUEMATSU***

Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital, Sapporo, Japan and
***Hokkaido Brain Research Foundation, Sapporo, Japan.

Summary : We report a rare case of ruptured bilateral distal anterior cerebral artery aneurysm (DACAAN) in a mirror position. They are joined with another incidental aneurysm. This patient, 61-year-old woman, showed no vascular anomaly, severe atherosclerosis, nor systemic disease except hypertension. All aneurysms are performed successful surgical treatment. The incidence is rare, but aneurysms in this position suggest some features for consideration of pathogenesis of cerebral aneurysms. We reviewed several concerned literature and discussed the pathogenesis.

Key words :

- Anterior cerebral artery
- Cerebral aneurysm
- Mirror image
- Subarachnoid hemorrhage

1. はじめに

末梢性前大脳動脈瘤 (Distal Anterior Cerebral Artery Aneurysm. 以下 DACAAN) は、全脳動脈瘤の2.7~9.2%とされ、比較的低頻度である¹⁰⁾。そのうち、両側対称性 (mirror image) のものとなると、更に稀である。しかし、動脈瘤発生の pathogenesis を考える際に、興味深い特徴がいくつかある。今回我々は、両側の Pericallosal artery (PcalA) -Callosomarginal artery (CMA) 分岐部に生じた mirror image aneurysm を経験したので、これに若干の文献的考察を加えて報告する。

2. 症 例

61歳、女性。

家族歴：特記すべきことはない。

既往歴：かねてより高血圧を指摘されていたが、放置していた。

現病歴：1994年1月28日午前3時頃、睡眠中に突然で激しい頭痛を自覚し、同日救急車にて当院に搬入された。入院時、意識は清明で、神経脱落症状を認めなかった。血圧は180/120mmHgであった。CTにて、大脳半球間裂及び右のシルビウス裂にSAHを認め、半球間裂には小さな血腫を伴っていた (Fig. 1)。Angiographyでは、両側のPcalA-CMA分岐部に、対称性に動脈瘤を認めた (Fig. 2)。また、lt.BA-SCA分岐部にも動脈瘤が存在した (Fig. 3)。破格や奇形は認めなかった。CTの所見から、破裂部位は左右いずれかのDACAANと考え、翌日clipping術を施行した。開頭は、正中から右に3横指、左に1横指の、bifrontal craniotomyとし、approachは右側のinterhemispheric approachとした。

中村記念病院 脳神経外科 (*現籍 福島県立医科大学脳神経外科) (**現籍 わだ脳神経外科クリニック)

***財団法人 北海道脳神経疾患研究所

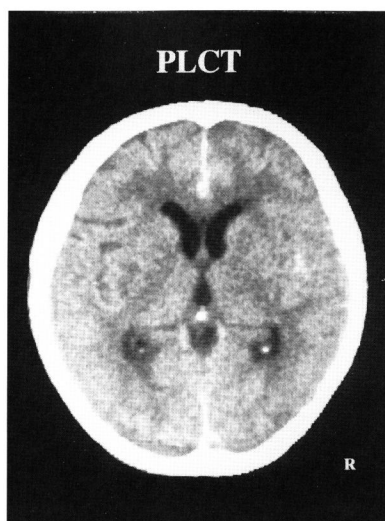


Fig.1 A plain CT scan on admission showed SAH in the interhemispheric and rt. sylvian fissure with small intraparenchymatous hematomas in the bilateral medial frontal lobe.

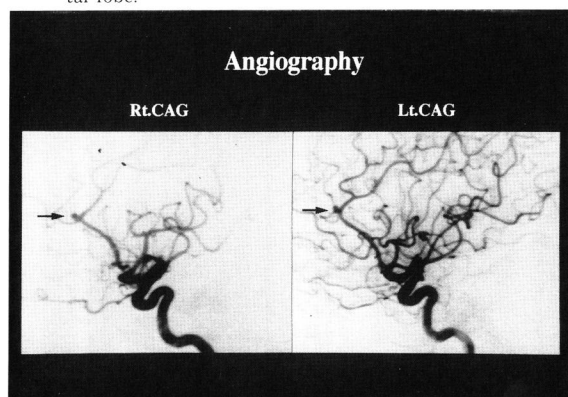


Fig.2 Pre-operative angiograms of bilateral internal cerebral artery, lateral views. Small and irregular-shaped aneurysms at bilateral A2-A3 junction were disclosed (arrow).

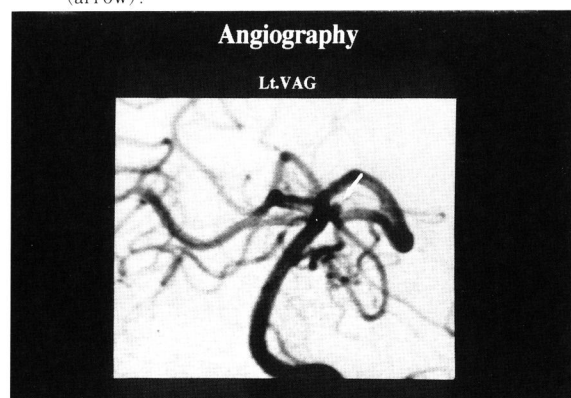


Fig.3 Pre-operative angiogram of Lt. vertebral artery, an oblique view. Another incidental aneurysm was disclosed at the Lt. basilar artery-superior cerebellar artery junction.

注意深く半球間裂を分けていくと、右側の動脈瘤の周囲に血腫が付着しており、こちらが破裂側と思われた。まず右側を clipping し、その後左側の動脈瘤にも neck clipping を行った。動脈硬化はそれ程強くなかった。術後、一過性に vasospasm による前頭葉症状が出現したが、その後精神・神経障害を残さず軽快した。発症後12日目に施行した Angiography では、動脈瘤陰影は消失しており、両側 ACA に vasospasm を認めるものの、clip による末梢動脈の kinking や閉塞は生じていなかった。

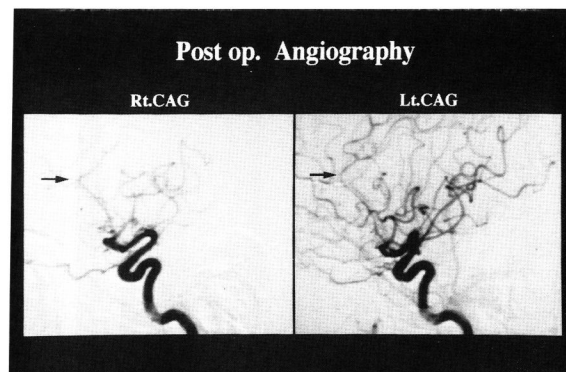


Fig.4 Post-operative angiograms of bilateral internal cerebral artery, lateral views show that both aneurysms were disappeared. Vasospasm of anterior cerebral arteries, but no kinking and/or occlusion were seen.

た (Fig. 4)。また、続発性水頭症も出現せず、症状の落ちついた3月31日、transzygomatic subtemporal approach にて、Lt.BA-SCA aneurysm の clipping を施行した。術後、左側頭葉下面に静脈性と思われる出血を生じ、軽度の意識障害を来した。また、左動眼神経麻痺が出現した。3カ月後、軽度の動眼神経麻痺は残存するものの、意識レベルは JCS 1 程度まで改善した。

3. 考 察

末梢性前大脳動脈瘤 (Distal Anterior Cerebral Artery Aneurysm. 以下 DACAAN) の頻度は、Hernesniemi らによれば、6千例を超す13の文献を平均すると、全動脈瘤の2.7~9.2% (平均4.4%) とされ、比較的稀である¹⁰⁾。両側対称性のものは更に稀で、Yaşargil の9例³⁸⁾を筆頭に、合計27例程度の報告があるに過ぎない^{3) 11) 14) 15) 17) 18) 19) 21) 22) 30) 36) 37) 38)}が、この部の動脈瘤は、脳動脈瘤発生の pathogenesis を論じる上でよく参考とされる。

DACAAN は、いくつかの興味深い特徴を持つことが知られている。まず、azygos ACA, supreme anterior communicating artery (supreme AcoA) 等の破格の他、

AVM等のvascular anomalyも多く合併する²⁾¹¹⁾¹⁵⁾¹⁶⁾¹⁸⁾²¹⁾²³⁾³⁶⁾³⁷⁾。殊に、azygos ACAの合併が多く報告され、Huberらは、pericallosal artery分岐部動脈瘤の25%にazygos ACAを認め、azygos ACAの41.1%でDACAANを認めた¹¹⁾と報告している。azygos ACAの頻度が0.2%程度である¹¹⁾ことを考えると、かなりの高率といえる。supreme AcoAも、5~21.4%の割合で認められている¹⁶⁾¹⁸⁾³⁶⁾³⁷⁾。また、Baptistaは、25%に何らかのvascular anomalyがあるとし¹⁾、Wisoff and Flammは、bihemisphere vessels, crossover of branches等のvariationも含めると、70%に走行異常があったとしている³⁶⁾。更に多発動脈瘤に合併し¹⁰⁾¹⁵⁾²³⁾³⁰⁾³⁶⁾³⁷⁾³⁸⁾⁴⁰⁾、破裂原因になることが多い¹⁰⁾のも大きな特徴である。一般に、全脳動脈瘤における多発動脈瘤の発生頻度は、18~30%とされる⁵⁾が、DACAANでは、34~55%と高値である¹⁰⁾¹⁵⁾²³⁾³⁰⁾³⁶⁾³⁷⁾³⁸⁾⁴⁰⁾。発症年齢は、通常の脳動脈瘤は50~60歳代とされる⁵⁾のに対し、DACAANは、これまでに報告された8 seriesの平均では49歳と若い傾向がある²⁾¹⁰⁾¹⁵⁾¹⁶⁾¹⁷⁾¹⁸⁾³⁰⁾³⁶⁾。また、年齢の割に動脈硬化が強い²¹⁾³⁸⁾のも特徴である。高血圧については、84例のうち、33%程度との報告がある¹⁰⁾。

mirror imageの動脈瘤については、最近の大橋らの報告を始めとする4 series³⁾¹⁹⁾²²⁾³⁹⁾の平均では、全脳動脈瘤中4.1%、多発動脈瘤中26.4%となる。部位別では、internal carotid arteryが61.1%、middle cerebral arteryが26.2%と80%以上を占めている。以下、anterior cerebral artery 10.2%、vertebro-basilar artery 2.5%の順であった。

mirror image DACAANについて検討してみると、年齢は33~61歳(平均51.7歳)、性差は1.6:1でやや男性に多かった。また、他の部位の動脈瘤合併率は25%、vascular anomalyについては、supreme AcoA, azygos ACA各一例(合計7.2%)であり、通常のDACAANとの間に差は見られなかった。

かねてより、動脈瘤の発生原因については、後天説と先天説が考えられてきた。前者は、高血圧、動脈硬化性病変、最近は、hemodynamic stressがその主原因とする説もある³¹⁾³²⁾。後者では、Eppingerは、Willis輪やその分枝の小さな動脈瘤では、弾力繊維の先天欠損、その他は、先天欠損に、degeneration, atheromatous processが加わり生ずるとの説を唱えた⁶⁾。また、Forbusは中膜欠損による先天説⁷⁾を、Bremerは胎生期遺残動脈説⁴⁾を発表した。更に、破格やAVMを多く合併することから、

血管形成異常説²⁶⁾³⁵⁾が報告されている。しかし、中膜欠損は通常よく見られ、加齢と共にその頻度が増すことから、これによる先天説は疑問視された⁸⁾²⁹⁾。更に、Glynnは、内弾性板が健在なら、中膜が欠損しても動脈壁は600mmHgに耐えうることを証明し、動脈瘤は内弾性板のatheromatous process等で後天的に形成されるとした⁸⁾。また、Stehbensは、Willis輪の破格はよく見られるもので、これによる血流異常が動脈瘤を形成するのであり³¹⁾、AVMとの合併も、同様の理由だとした³²⁾。

しかし、破格や高血圧を認めない例でもDACAANは少なからず発症しており¹⁰⁾¹⁵⁾¹⁶⁾²³⁾³⁷⁾³⁸⁾⁴⁰⁾、後天説のみでは説明しきれない部分もある。また、Azygos ACAの高率の合併は、hemodynamic stress以外に、先天因子の関与をも示唆すると思われる¹⁶⁾²¹⁾²³⁾。胎生期遺残動脈である、supreme AcoAは、通常はまず見られないものであり、DACAANとの高率の合併率は、やはり先天因子の関与を示すものであろう²¹⁾。

ところで、病理組織学的に見ると、動脈瘤に特徴的な所見として、中膜欠損の他に、内弾性板の断裂ないし欠損が挙げられる。Becker and NewtonのDACAAN 12例のseries中でも、平滑筋及び弾性繊維の欠損例が報じられている²⁾。前出のGlynnはこの原因を後天的な変性に求めたが、最近の報告では、先天因子の関与が指摘されている。Polycystic KidneyやEhlers-Danlos syndrome (type IV)に動脈瘤が合併することはよく知られているが¹³⁾¹⁷⁾²⁰⁾³³⁾³⁴⁾、Polycystic kidneyの剖検を行った池田ら¹³⁾によれば、Willis輪の動脈壁は、所々内弾性板が断裂または欠損しており、atheromatous changeも多く認めた。彼らはこれを先天的なcollagen, elastinの異常によるものとした。黒岩らは、そのような先天因子に後天的要素が加わって動脈瘤が生じると考察している¹⁷⁾。また、Ehlers-Danlos syndrome (type IV)では、collagen fibril及びfiber structureに関与するとされるtype III collagenの欠損が知られている²⁰⁾³³⁾³⁴⁾が、最近、動脈瘤患者でも、その40~50%²⁸⁾、一説には60%²⁷⁾で欠損が指摘されている。Φstergaadらは、破裂動脈瘤患者と正常例のtype III collagenを定量、比較し、破裂例ではtype III collagenが不足ないし欠損している群があり、そのような群では血管に異常な伸展性を持つことから、動脈瘤の形成とtype III collagenの関係を指摘した²⁵⁾。彼らは更に、atherosclerosisに関与するとされるC3-F geneを破裂動脈瘤患者で検討し、40~49歳の比較

的若年層に高値であったことから、若年期の破裂に、C3-F gene による動脈硬化が関係するとした²⁴⁾。また、家族性動脈瘤患者は、collagen や elastin の異常も含め、様々な遺伝的要素が考えられているが、若年層で発症する(平均42.3歳)、多発性、mirror 症例が多い²⁰⁾³³⁾³⁴⁾等、DACAAN との類似点が多い。池田らは、多発性動脈瘤患者で、It.DACAAN 術後2年で対称部位に動脈瘤を生じた例を¹²⁾、川村ら、Kadoyaらは各々、mirror image DACAAN に、同時に middle cerebral artery bifurcation の mirror image aneurysm を合併した例を報告しており¹⁴⁾¹⁵⁾、これらは動脈瘤患者が先天的に血管脆弱性を持つ可能性を指摘するものと思われる。

以上から、動脈瘤の発生には、胎生期の血管形成、type III collagen や C3-F gene の異常といった先天因子に加え、hemodynamic stress 等の後天因子が関与すると思われる。特に、若年者の多発性動脈瘤には、遺伝的要因が強く働くことが推察される。

最後に、DACAAN の治療上の注意点として、周囲の cistern が狭く、動脈瘤が脳内に埋没しやすい為、手術時は慎重な操作を要すること、動脈硬化の強い small aneurysm が多く、clipping が困難な例が多いことが挙げられる³⁸⁾。本例も small aneurysm であったが、動脈硬化は強くなく、Yaşargil の mini-clip が有用であった。また、多発症例の術後数年での動脈瘤新生例が散見される⁹⁾¹²⁾ことから、本例には、今後も MRA 等による注意深い観察が必要と考える。

文 献

- 1) Baptista AG : Studies on the arteries of the brain. II. The anterior cerebral artery : some anatomic features and their clinical implications. Neurology (NY) 13 : 825-835,1963.
- 2) Becker DH, Newton TH : Distal anterior cerebral artery aneurysm. Neurosurgery 4 : 495-503,1979.
- 3) Bigelow NH : Multiple intracranial arterial aneurysms. Arch Neurol Psychiat 73 : 76-99,1955.
- 4) Bremer JL : Congenital aneurysms of cerebral arteries. An embryologic study. Arch Path 35 : 819-831,1943.
- 5) Cervoni L, Delfini R, Santoro A, Cantore G : Multiple Intracranial Aneurysms : Surgical treatment and Outcome. Acta Neurochir (Wien) 124 : 66-70,1993.
- 6) Eppinger (from Fearnside EG: Intracranial aneurysms.) Brain 39 : 224-296,1919.
- 7) Forbus WD : On the origin of miliary aneurysms of the superficial cerebral arteries. Bull. Johns Hopkins Hospital 47 : 239-284,1930.
- 8) Glynn LE : Medial defects in the circle of Willis and their relation to aneurysms formation. J Path Bact 51 : 213-222,1940.
- 9) Graf CJ, Hamby WB : Report of a case of aneurysm in adult developing apparenly denovo. J Neurol Neurosurg Phychiat 27 : 153-156,1964.
- 10) Hernesniemi J, Tapaninaho A, Vapalahti M, Niskanen M, Kari A, Luukkonen M : Saccular Aneurysms of the Distal Anterior Cerebral Artery and Its Branches. Neurosurgery 31 : 994-999,1992.
- 11) Huber P, Braun J, Hirschmann D, Agyeman JF : Incidence of Berry Aneurysms of the Unpaired Pericallosal Artery : Angiographic Study. Neuroradiology 19 : 143-147,1980.
- 12) 池田清延, 早瀬秀男, 林 実, 山本信二郎 : 前脳動脈瘤病変と脳動脈瘤の新生. 脳神経外科 12 : 1151-1158,1984.
- 13) 池田秀敏, 吉本高志 : Polycystic kidney 剖検例におけるウイリス動脈輪の病理. 脳神経 39 : 909-913,1987.
- 14) Kadoya C, Momota Y, Urasaki E, Wada S, Yokota A : Double Bilateral Symmetrical Aneurysms -Case Report- Neurol Med Chir (Tokyo) 34 : 35-37,1994.
- 15) 川村伸悟, 鈴木明文, 佐山一郎, 安井信之 : 破裂末梢性前大脳動脈瘤. 脳卒中 10 : 298-305,1988.
- 16) 木下和夫, 松角康彦 : 末梢性前大脳動脈瘤. 脳と神経 27 : 1193-1202,1975.
- 17) 黒岩敏彦, 田邊治之, 高塚広行, 板井伸好, 新井基弘, 長澤史朗, 太田富雄 : 腎肝多発性嚢胞症に両側末梢性前大脳動脈動脈瘤を合併した一例. 脳神経外科 20 : 905-908,1992.
- 18) Laitinen L, Snellman A : Aneurysms of the Pericallosal Artery. A Study of 14 Cases Verified Angiographically and Treated Mainly by Direct Surgical Attack. J Neurosurg 17 : 447-458,1960.
- 19) Locksley HB : Report of the cooperative study of intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhage. Section V, Part I. Natural history of subarachnoid hemorrhage, intracranial aneurysms and arteriovenous malformations. Based on 6368 cases in the cooperative study. JNS 25 : 219-239,1966.
- 20) Lozano AM, Lebranc R : Familial intracranial aneurysms. J Neurosurg 66 : 522-528,1987.
- 21) 新島 京, 米川泰弘, 河野輝昭 : 両側対称性 Distal ACA 動脈瘤. 脳神経外科 17 : 779-781,1989.
- 22) 大橋経昭, 松田昌之, 半田讓二 : 両側対称性脳動脈瘤. 脳卒中 13 : 301-308,1991.
- 23) Ohno K, Monma S, Suzuki R, Masaoka H, Matsushima Y, Hirakawa K : Saccular Aneurysms of the Distal Anterior Cerebral Artery. Neurosurgery 27 : 907-913,1990.

- 24) Φ stergaard JR, Bruun-Petersen G, Kristensen BO : The C3-F gene in patients with intracranial saccular aneurysms. *Acta Neurol Scand* 74 : 356-359, 1986.
- 25) Φ stergaad JR, Oxlund H : Collagen type III deficiency in patients with rupture of intracranial saccular aneurysms. *J Neurosurg* 67 : 690-696, 1987.
- 26) Pool JL and Potts DG : Aneurysms and arteriovenous anomalies of the brain. Harper and Row, New York, 1965.
- 27) Pope FM, Nicholls AC, Narcisi P, Bartlett J, Neil-Dwyer G : Some patients with cerebral aneurysms are deficient type III collagen. *Lancet* 1 : 973-975, 1981.
- 28) Pope FM : Type III collagen mutations and cerebral aneurysms (letter). *Stroke* 20 : 1432, 1989.
- 29) Sahs AL : Report of the cooperative study of intracranial aneurysms and subarachnoid hemorrhage. Section I. Observation on the pathology of saccular aneurysms. *J Neurosurg* 24 : 792-806, 1966.
- 30) Sindou M, Pelissou-Guyotat I, Mertens P, Keravel Y, Athayde AA : Pericallosal Aneurysms. *Surg Neurol* 30 : 434-440, 1988.
- 31) Stehbens WE : Aneurysms and anatomical variation of cerebral arteries. *Arch Path* 75 : 45~64, 1963.
- 32) Stehbens WE : The pathology of intracranial aneurysms and their complication, in Fox JL (ed.) : *Intracranial aneurysms*. New York, Springer-Verlag, vol I, ch 11, 1983.
- 33) ter Burg HWM, Dippel DWJ, Limburg M, Schievink WI, van Gijn J : Familial Intracranial Aneurysms. -A Review- *Stroke* 23 : 1024-1030, 1992.
- 34) Weil StM, Olivi A, Greiner AL, Tobler WD : Multiple Intracranial Aneurysms in Identical Twins. *Acta Neurochir (Wien)* 95 : 121-125, 1988.
- 35) Wilson G, Riggs HE, Rupp C : The pathologic anatomy of ruptured cerebral aneurysms. *J Neurosurg* 11 : 128-134, 1954.
- 36) Wisoff JH, Flamm ES : Aneurysms of the Distal Anterior Cerebral Artery and Associated Vascular Anomalies. *Neurosurgery* 20 : 735-741, 1987.
- 37) Yaşargil MG, Carter LP : Saccular aneurysms of the distal anterior cerebral artery. *J Neurosurg* 39 : 218-223, 1974.
- 38) Yaşargil MG : Distal Anterior Cerebral Artery Aneurysms (pericallosal artery aneurysms). In *Microneurosurgery* vol 2. Stuttgart/New York, Georg Thieme Verlag, pp224-231, 1984.
- 39) 吉本高志, 高久 晃, 鈴木二郎 : 両側対称性脳動脈瘤-中大脳動脈瘤の2例-. *脳と神経* 23 : 541-544, 1971.
- 40) Yoshimoto T, Uchida K, Suzuki J, : Surgical treatment of distal anterior cerebral artery aneurysms. *J Neurosurg* 50 : 40-44, 1979.