

症例報告

脳室内出血を呈した後下小脳動脈解離の一例

鎌田 一晃^{1,2}, 丸山 大輔^{2*}, 後藤 雄大¹, 木村 聡志¹

¹京都第一赤十字病院 脳神経外科

²京都府立医科大学大学院医学研究科脳神経機能再生外科学 (脳神経外科)

A Case of Intraventricular Hemorrhage due to Posterior Inferior Cerebellar Artery Dissection

Kazuaki Kamata, Daisuke Maruyama, Yudai Goto and Satoshi Kimura

¹Department of Neurosurgery, Kyoto First Red Cross Hospital

²Department of Neurosurgery,

Kyoto Prefectural University of Medicine Graduate School of Medical Science

抄 録

症例は50歳代の女性、遷延する頭痛を主訴に救急搬送された。頭部単純CTでは主に右側脳室体部に少量の出血を認め、原発性脳室内出血の診断で保存的加療を開始した。入院時の頭部造影CTでは明らかな血管異常を指摘できなかったが、第5病日の脳血管撮影検査で右後下小脳動脈の末梢に紡錘状拡張を認めた。同部位は造影MRIで増強効果を認め、出血源と疑われた。引き続き保存的加療を選択した。脳血管撮影検査による追跡で紡錘状拡張所見は経時的に改善し、約1ヶ月後に動脈の口径不整は消失した。その間に再出血なく経過し、独歩退院となった。本症例では脳室内出血の分布からは後頭蓋窩の血管異常を疑いにくく、比較的末梢の解離性病変であったことから診断に時間を要した。血管異常を伴う脳室内出血では予後不良の転帰を辿りうるため、末梢病変の有無を含めて脳血管撮影検査などによる慎重な精査が必要である。

キーワード：脳室内出血，末梢性後下小脳動脈瘤，動脈解離。

Abstract

A 50-year-old woman was brought to our hospital with a chief complaint of persistent headache. A simple CT scan of the head showed a small hemorrhage, mainly in the right ventricular body. Conservative treatment commenced for a diagnosis of primary intraventricular hemorrhage. On admission, no obvious vascular abnormalities were detected by the contrast-enhanced CT scan; however, on the fifth day, cerebral angiography revealed a spindle-shaped dilatation in the right posterior inferior cerebellar artery. Contrast-

令和5年2月17日受付 令和5年3月6日受理

*連絡先 丸山大輔 〒602-8566 京都市上京区河原町通広小路ル梶井町465番地

dmaruyam@koto.kpu-m.ac.jp

doi:10.32206/jkpum.132.05.325

enhanced MRI exhibited a reinforced effect in the same area, which was suspected to be the source of the hemorrhage. Conservative treatment was continued, and the spindle dilation findings on the cerebral angiography improved with time. The irregularity in the artery caliber disappeared in approximately one month. The patient was self-discharged from the hospital after a short period without rebleeding. The distribution of the intraventricular hemorrhage made it difficult to suspect any vascular abnormalities in the posterior cranial fossa, and the relatively small peripheral lesion made the diagnosis time-consuming. An intraventricular hemorrhage with vascular abnormalities may have a poor prognosis; therefore, careful examination using cerebral angiography is necessary, with the presence of peripheral lesions in mind.

Key Words: Intraventricular hemorrhage, Distal posterior inferior cerebellar artery aneurysm, Arterial dissection.

緒 言

脳室内出血の原因は多岐にわたり、血管異常を伴う場合には生命予後が不良となる場合もある。頭痛で発症した脳室内出血において、後下小脳動脈（PICA）末梢における解離性の紡錘状拡張が出血源との診断に至るまでに時間を要した症例を報告する。

症 例

患者：50歳代，女性。

主訴：頭痛。

現病歴：4日前から頭痛が出現し，増悪傾向であった。自宅で経過を見ていたが症状が改善しないため，当院へ救急搬送された。

既往症：松果体部腫瘍，子宮筋腫，自己免疫性肝炎。

内服歴：プレドニゾロン5mg，ウルソデオキシコール酸100mg，L-アスパラギン酸カルシウム水和物200mg，アルファカルシドール0.5 μ g，ランソプラゾール15mg。

生活歴：喫煙なし，飲酒なし。

家族歴：特記事項なし。

入院時現症：血圧152/85mmHg，脈拍99bpm。意識はJCS I-1。瞳孔径は3mmで左右同大。四肢に明らかな麻痺や感覚障害を認めなかった。

入院時画像所見：頭部単純CTで右側脳室体部に出血を認めた。また橋前槽と第4脳室内にもわずかな出血を疑う高信号域を認めた（図1）。脳室拡大は認めなかった。頭部造影CTでは血腫の

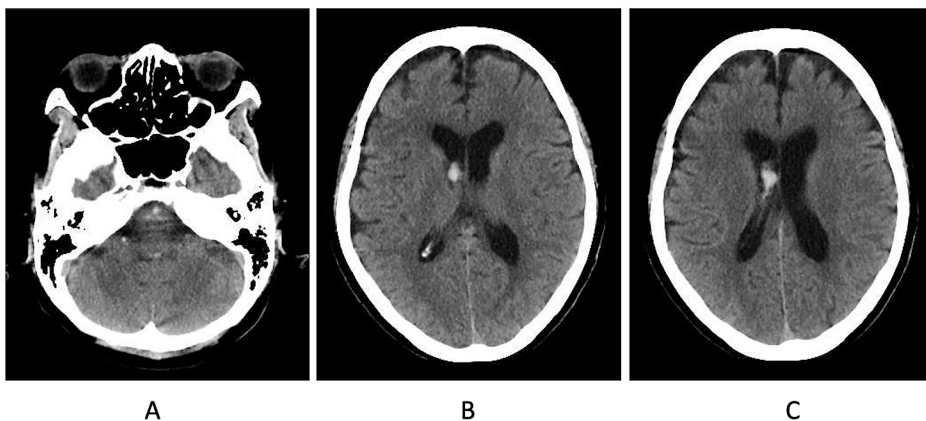


図1 入院時の頭部単純CT

橋前槽と第4脳室内に出血を疑うわずかな高吸収域を認めた（A）。右側脳室体部に出血を認めた（B, C）。

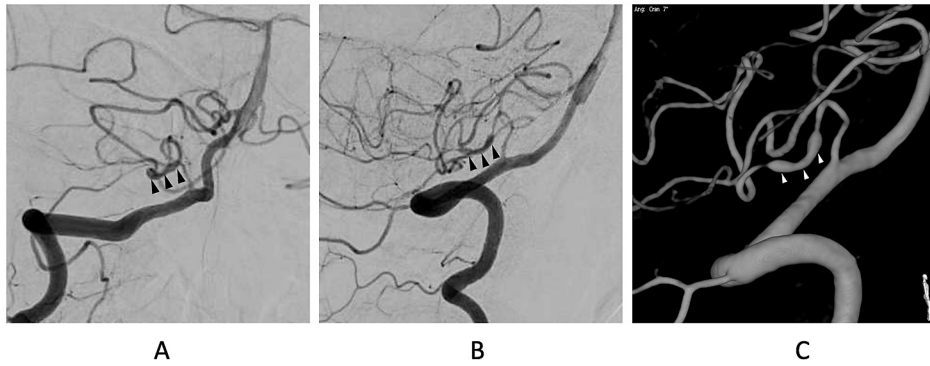


図2 第5病日の脳血管撮影検査

右椎骨動脈撮影の正面像 (A) と側面像 (B) および3D再構成画像 (C) において、右後下小脳動脈の tonsillo-medullary segment に紡錘状の拡張所見を認めた (矢頭)。右後下小脳動脈の起始部の径は1.1mmであった。

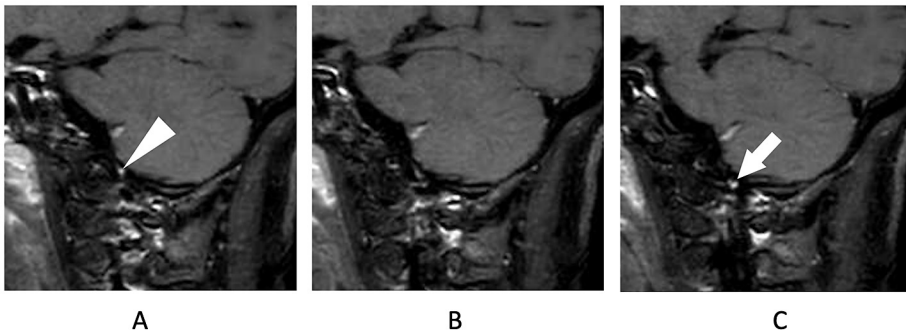


図3 第6病日の頭部造影MRI

右後下小脳動脈における紡錘状拡張部の近位部 (A)、中央部 (B)、遠位部 (C) の造影T1強調画像矢状断像。近位部 (矢頭) と遠位部 (矢印) に増強効果を認めた。

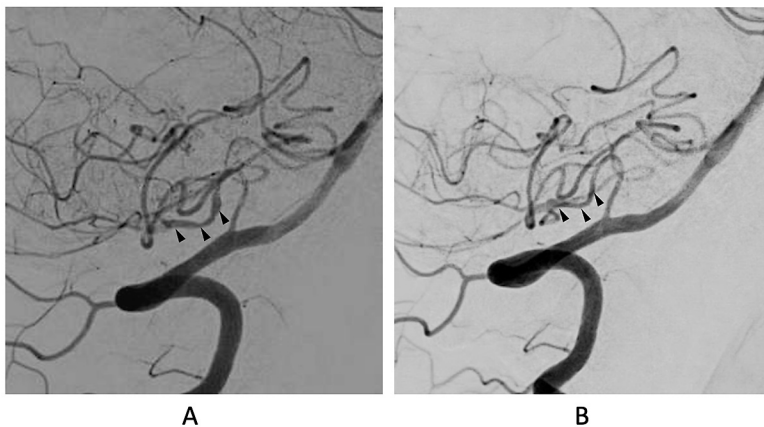


図4 第12病日と第29病日の脳血管撮影検査

第12病日 (A) と第29病日 (B) における右椎骨動脈撮影の側面像。経時的に右後下小脳動脈の紡錘状拡張所見は縮小し、第29病日では動脈の口径不整も消失した (B)。

周囲に明らかな造影病変を認めなかった。入院時血液検査：PT活性値90%，PT時間12.9秒，PT-INR 1.1，APTT時間37.6秒，フィブリノーゲン604mg/dL，Dダイマー<1.0 μ g/mL。入院後経過：右側脳室内の出血は少量で水頭症も呈していなかったため、原発性脳室内出血の診断で保存的加療の方針とし、収縮期血圧140mmHg未満を目標に血圧管理を開始した。翌日の頭部単純CTでは出血の増大はなかった。頭痛は緩徐に軽減し、数日間の経過で消失した。第5病日に出血源精査のため脳血管撮影検査を行うと、右PICAのtonsillomedullary segmentに紡錘状の拡張を認めた(図2)。第6病日に頭部造影MRIを施行すると、造影T1強調画像にて右PICAの紡錘状拡張の近位部と遠位部付近に造影効果を認めた(図3)。以上の所見より右PICAの紡錘状拡張部分が出血源として疑われた。治療方針としては引き続き保存的加療を選択した。第12病日と第29病日に脳血管撮影検査を再検査すると、右PICAの紡錘状拡張は経時的に縮小し、第29病日では動脈壁の口径不整も消失していた(図4)。第30病日にmodified Rankin Scale score 0で自宅退院となった。その後1年間の外来追跡において、再出血のエピソードなく経過している。

考 察

脳室内出血は原発性と続発性に大別される。Sandersらは脳出血症例の剖検所見をもとに、脳室内に限局した出血を原発性脳室内出血と定義し、脳実質内出血が脳室内に穿破して生じる続発性脳室内出血と区別した¹⁾。くも膜下出血や脳実質内出血に合併する場合を続発性と分類し、その他の原因疾患を有する場合でも脳室内に限局した出血であれば原発性と分類することが一般的である²⁾。原発性脳室内出血は新生児に生じることが多いが、成人に発症する場合には高血圧症の他に、脳動静脈奇形、脳動脈瘤、もやもや病、動静脈瘻などの血管異常や凝固異常などが原因となることが報告されている³⁾。原発性脳室内出血では比較的前後が良好とされるが³⁾、出血原因のうち脳動脈瘤などの血管異常は再出血

により生命予後が不良となる場合があるため、続発性の場合はもちろん、原発性の場合でも慎重な原因検索が必要である。本症例では高血圧症の既往はなく、入院時の血液検査で凝固異常を認めなかった。脳血管撮影検査にて右PICAの末梢に紡錘状の拡張を認め、造影MRIによるvessel wall imagingの所見と合わせて末梢性動脈瘤の破裂による続発性脳室内出血であることが示唆された。入院時の頭部CTではわずかなくも膜下出血と第4脳室内の出血を示唆する所見はあるものの、主たる所見は側脳室体部からの原発性脳室内出血を思わせる所見であったため待機的に原因を精査したこと、右PICA自体が小径で紡錘状拡張も著明でなく、比較的末梢の病変だったことが出血源の診断へと至るまでに時間を要した要因と考える。頭痛の発症より数日間経過していたことから、入院時の頭部単純CTでは脳槽内や第4脳室内の出血が消退しており、診断過程に影響した可能性も考慮される。

PICAの動脈瘤は全頭蓋内動脈瘤の1.4~4.5%と報告され⁴⁾⁵⁾、椎骨動脈との分岐部よりも遠位の末梢性PICA動脈瘤はそのうち30%未満とされる⁶⁾⁷⁾。Williamsonらによる形態的な評価では、動脈解離による紡錘状動脈瘤の割合がPICA以外の動脈瘤では12%であったのに対して、PICA動脈瘤では36%と有意に多かったと報告している⁸⁾。本症例ではPICAの紡錘状の拡張所見と、第12病日と第29病日に施行した脳血管撮影検査でその所見が経時的に改善したことから、動脈解離が生じていたと判断した。本邦では頭蓋内動脈解離は椎骨脳底動脈系に多く、出血例における再出血は生命予後に大きく影響する⁹⁾。また発症から再出血までの期間は短く、とりわけ迅速な外科治療介入が必要とされる¹⁰⁾。このような事項を念頭に置きつつも、本症例では出血源の診断時点で発症からすでに10日間ほど経過して再出血がないこと、またPICAの径が細いため直達手術と脳血管内治療のどちらでも母血管閉塞を選択する可能性が高く、穿通枝障害のリスクが懸念されたことから、引き続き保存的加療を選択した。再出血は言うまでもなく、紡錘状拡張が増大するようであれば早期の外科治療介

入が必要だったと考える。

本症例では出血源を判断する一助として、造影MRIによるvessel wall imagingを用いた。脳動脈瘤壁の増強効果は壁の不安定性のバイオマーカーであり、くも膜下出血患者の大多数で血管壁の増強効果を伴う動脈瘤を認めることが報告されている¹¹⁻¹³⁾。本症例でもPICAの紡錘状拡張の近位部と遠位部に増強効果を認めたため、破裂源である可能性を考慮した。偽陽性の可能性はあるが、未破裂の頭蓋内動脈解離においても動脈壁の増強効果は瘤状変化の増悪などの不安定な変化と相関することが報告されており¹⁴⁾、

いずれにせよ嚴重な血圧管理を継続するという治療方針の根拠として有用だったと考える。

結 語

脳室体部を中心とした脳室内出血において、後下小脳動脈末梢の動脈解離による紡錘状動脈瘤が出血源と診断するまでに時間を要した。血管異常を伴う脳室内出血では予後不良の転帰を辿りうるため、末梢病変の有無を含めて脳血管造影検査などによる慎重な精査が必要である。

開示すべき潜在的利益相反状態はない。

文 献

- 1) Sanders E. A study of primary, immediate, or, direct hemorrhage into the ventricles of the brain. *Am J Med Sci*, 82: 85-128, 1881.
- 2) 山口 佳昭, 中川 晃, 渡邊 英昭, 久門 良明, 榊 三郎, 佐々木 潮, 畠山 隆雄, 西原 潤, 麗 憲行. 原発性脳室内出血の臨床的検討. *脳外誌*, 9: 672-678, 2000.
- 3) Pai A, Hegde A, Nair R, Menon G. Adult Primary Intraventricular Hemorrhage: Clinical Characteristics and Outcomes. *J Neurosci Rural Pract*, 11: 623-628, 2020.
- 4) Bohnstedt BN, Ziemba-Davis M, Edwards G, Brom J, Payner TD, Leipzig TJ, Scott JA, DeNardo AJ, Palmer E, Cohen-Gadol AA. Treatment and outcomes among 102 posterior inferior cerebellar artery aneurysms: a comparison of endovascular and microsurgical clip ligation. *World Neurosurg*, 83: 784-93, 2015.
- 5) Starnoni D, Maduri R, Taha KA, Bervini D, Zumofen DW, Stienen MN, Schatlo B, Fung C, Robert T, Seule MA, Burkhardt J-K, Maldaner N, Rothlisberger M, Blackham KA, Marbacher S, D'Alonzo D, Remonda L, Machi P, Gralla J, Bijlenga P, Saliou G, Ballabeni P, Levivier M, Messerer M, Swiss SOS Group, Daniel RT. Ruptured PICA aneurysms: presentation and treatment outcomes compared to other posterior circulation aneurysms. A Swiss SOS study. *Acta Neurochirurgica*, 161: 1325-1334, 2019.
- 6) Petr O, Sejkorová A, Bradáč O, Brinjikji W, Lanzino G. Safety and efficacy of treatment strategies for posterior inferior cerebellar artery aneurysms: a systematic review and meta-analysis. *Acta Neurochir (Wien)*, 158: 2415-2428, 2016.
- 7) Horiuchi T, Tanaka Y, Hongo K, Nitta J, Kusano Y, Kobayashi S. Characteristics of distal posteroinferior cerebellar artery aneurysms. *Neurosurgery*, 53: 589-596, 2003.
- 8) Williamson RW, Wilson DA, Abula AA, McDougall CG, Nakaji P, Albuquerque FC, Spetzle RF. Clinical characteristics and long-term outcomes in patients with ruptured posterior inferior cerebellar artery aneurysms: a comparative analysis. *J Neurosurg*, 123(2): 441-5, 2015.
- 9) 水谷 徹, 有賀 徹. くも膜下出血で発症した椎骨脳底動脈解離性動脈瘤における再出血の時期, 頻度と転帰—自験20例および文献48例の検討—. *脳卒中の外科学*, 22: 389-393, 1994.
- 10) Tawk RG, Bendok BR, Qureshi AI, Getch CC, Srinivasan J, Alberts M, Russell EJ, Batjer HH. Isolated dissections and dissecting aneurysms of the posterior inferior cerebellar artery: topic and literature review. *Neurosurg Rev*, 26(3):180-7, 2003.
- 11) Edjlali M, Gentric J-C, Régent-Rodriguez C, Trystram D, Hassen WB, Lion S, Nataf F, Raymond J, Wieben O, Turski P, Meder J-F, Oppenheim C, Naggara O. Does aneurysmal wall enhancement on vessel wall MRI help to distinguish stable from unstable intracranial aneurysms? *Stroke*, 45: 3704-3706, 2014.
- 12) Edjlali M, Guédon A, Hassen WB, Boulouis G, Benzakoun J, Rodriguez-Régent C, Trystram D, Nataf F, Meder J-F, Turski P, Oppenheim C, Naggara O. Circumferential thick enhancement at vessel wall MRI has high specificity for intracranial aneurysm instabili-

- ty. *Radiology*, 289: 181-187, 2018.
- 13) Omodaka S, Endo H, Niizuma K, Fujimura M, Inoue T, Endo T, Sato K, Sugiyama S, Tominaga T. Circumferential wall enhancement in evolving intracranial aneurysms on magnetic resonance vessel wall imaging. *J Neurosurg*, 1: 1-7, 2019.
- 14) Hashimoto Y, Matsushige T, Shimonaga K, Takahashi H, Mizoue T, Kaneko M, Ono C, Yamashita H, Yoshioka H, Sakamoto S, Kurisu K. Magnetic resonance vessel wall imaging predicts morphological deterioration in unruptured intracranial artery dissection. *J Stroke Cerebrovasc Dis*, 29: 105006, 2020.