

症 例

前大脳動脈領域への側副血行路上動脈瘤破裂に対し、流入動脈クリッピング術と直接・間接血行再建術を施行したもやもや病の1例

池上 方基, 小磯 隆雄, 橋村 直樹, 築家 秀和
石黒 太一, 池田 剛, 濱野 栄佳, 西村 真樹
森 久恵, 佐藤 徹, 中川原譲二, 高橋 淳

A Ruptured Aneurysm Associated with Ischemia of Anterior Cerebral Artery Territory in Moyamoya Disease Treated by Proximal Clipping and Direct/Indirect Bypass: A Case Report

Masaki IKEGAMI, M.D., Takao KOISO, M.D., Ph.D., Naoki HASHIMURA, M.D., Hidekazu CHIKUIE, M.D., Taichi ISHIGURO, M.D., Go IKEDA, M.D., Ph.D., Eika HAMANO, M.D., Masaki NISHIMURA, M.D., Ph.D., Hisae MORI, M.D., Tetsu SATOW, M.D., Ph.D., Jyoji NAKAGAWARA, M.D., Ph.D., and Jun TAKAHASHI, M.D., Ph.D.

Department of Neurosurgery, National Cerebral and Cardiovascular Center, Suita, Osaka, Japan

Summary: A 41-year-old woman with Moyamoya disease (MMD) who had undergone bilateral indirect bypass during childhood presented with intracerebral hemorrhage in the genu of the corpus callosum. Digital subtraction angiography (DSA) revealed an occluded right anterior cerebral artery (ACA) and a small aneurysm in the frontal lobe, which arose on an unusual collateral artery from the M3 portion of the right middle cerebral artery. Since the aneurysm was still present on day 15, we performed proximal clipping using the navigation-guided trans-sulcal approach. Superficial temporal artery (STA)-ACA bypass with an indirect procedure was also performed to prevent further aneurysm-formation. The aneurysm disappeared on DSA, and the patient fully recovered without neurological deficits.

Aneurysm formation at this site is extremely rare. Single-stage proximal clipping and bypass surgery to reduce hemodynamic stress can be a potentially effective therapeutic strategy.

Key words:

- ・ moyamoya disease
- ・ peripheral aneurysm
- ・ proximal clipping
- ・ STA-ACA bypass
- ・ trans-sulcal approach

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 49: 123-128, 2021

はじめに

もやもや病において、増生した側副血行路上の動脈瘤破裂はまれではないが、その多くはレンズ核線条体動脈や脈

絡叢動脈に発生する⁵⁾。今回、middle cerebral artery(MCA)遠位部(M3)から起始し、前頭葉実質内を走行して anterior cerebral artery(ACA)虚血領域に向かう側副血管上に発生した、まれな破裂動脈瘤を経験した。navigation ガイド

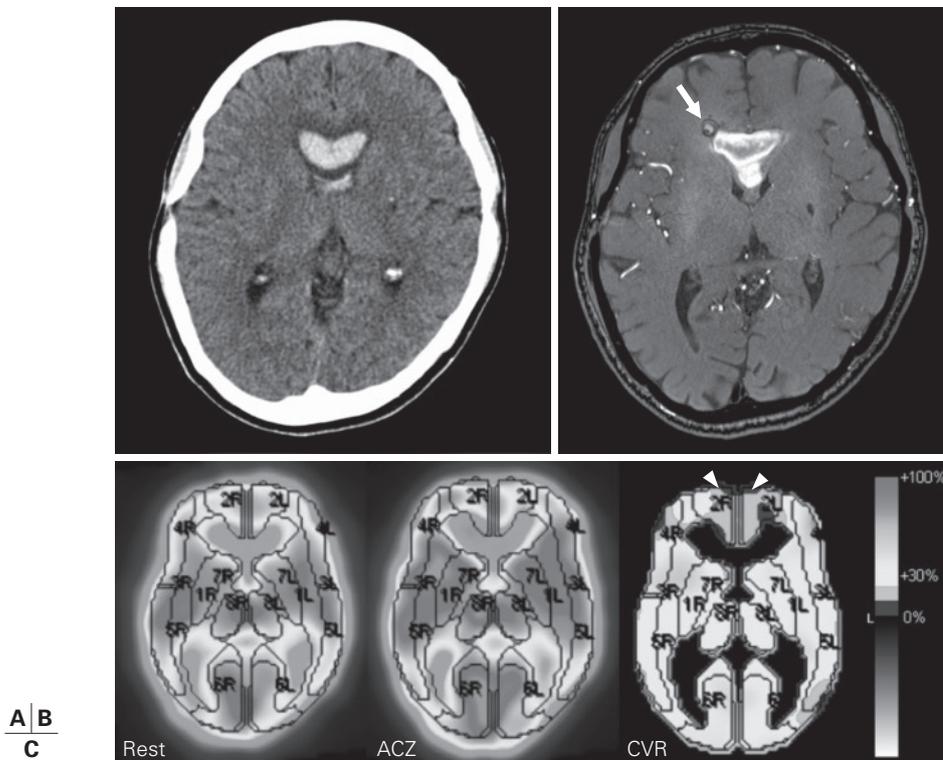


Fig. 1 Radiological examinations.

A: Computed tomography (CT) on admission.

B: Time-of-flight (TOF) magnetic resonance (MR) angiography on admission. Arrow: ruptured aneurysm in the right frontal lobe.

C: N-isopropyl-p-[123I]iodo-amphetamine (IMP) single photon emission computed tomography (SPECT) obtained 7 days after onset. Arrowheads: decreased cerebrovascular reactivity in bilateral ACA territories.

ACZ: acetazolamide

下での経脳溝的流入動脈遮断とACA領域への直接・間接血行再建術を行い、良好な転帰を得たので報告する。

症 例

41歳，女性。

意識消失発作と頭痛で近医を受診，脳出血を認めたため当院緊急入院となった。8歳時にもやもや病と診断，10歳時に他院で両側 encephalo-duro-arterio-synangiosis(EDAS)を施行されている。妹，娘にもやもや病の治療歴がある。入院時は軽度頭痛以外，神経学的異常を認めなかった。

入院時 computed tomography(CT)で脳梁膝部出血を認めた(Fig. 1A)。digital subtraction angiography(DSA)では，左 internal carotid artery 終末部高度狭窄と側副血管網増生がみられた(Fig. 2B)。右ACAは描出されず，MCA M3から起始して前頭葉実質内を内側に走行する側副血管，およびその末梢の動脈瘤(径3.7mm)が確認された(Fig. 2A, C-E)。EDASは左半球では機能していたが，右では間接血行路がまったくみられなかった。前頭葉実質内

の動脈瘤は magnetic resonance imaging(MRI)で血腫に連続し，今回の出血源と診断した(Fig. 1B)。single photon emission computed tomography(SPECT)での安静時血流量は概ね保持されていたが，アセタゾラミド負荷で両側ACA領域に循環予備能低下を認めた(Fig. 1C)。左ACA領域の血行力学的障害により前頭葉内に側副血行路が形成され，動脈瘤発生・破裂にいたったと考えられた。病変が脳実質内深部にあり，瘤の自然消失例も報告されることから保存的治療を開始した。

発症15日後のDSAで動脈瘤は消失しておらず，再出血予防のための治療を決定した。流入血管はM3からの細径血管であり，マイクロカテーテル誘導は困難と判断し，開頭術による流入血管近位遮断を計画した。シルビウス裂内からのアプローチでは標的血管(Fig. 2F, *印)の起始部同定が困難と予想された。MRIおよび3D-DSAで前頭葉弁蓋部の皮質動脈(Fig. 2F, 白矢印)と動脈瘤への流入血管(Fig. 2F, 白矢頭)が脳溝深部で合流しており，この皮質枝を脳表で同定して脳溝内を深部に追跡することで，流

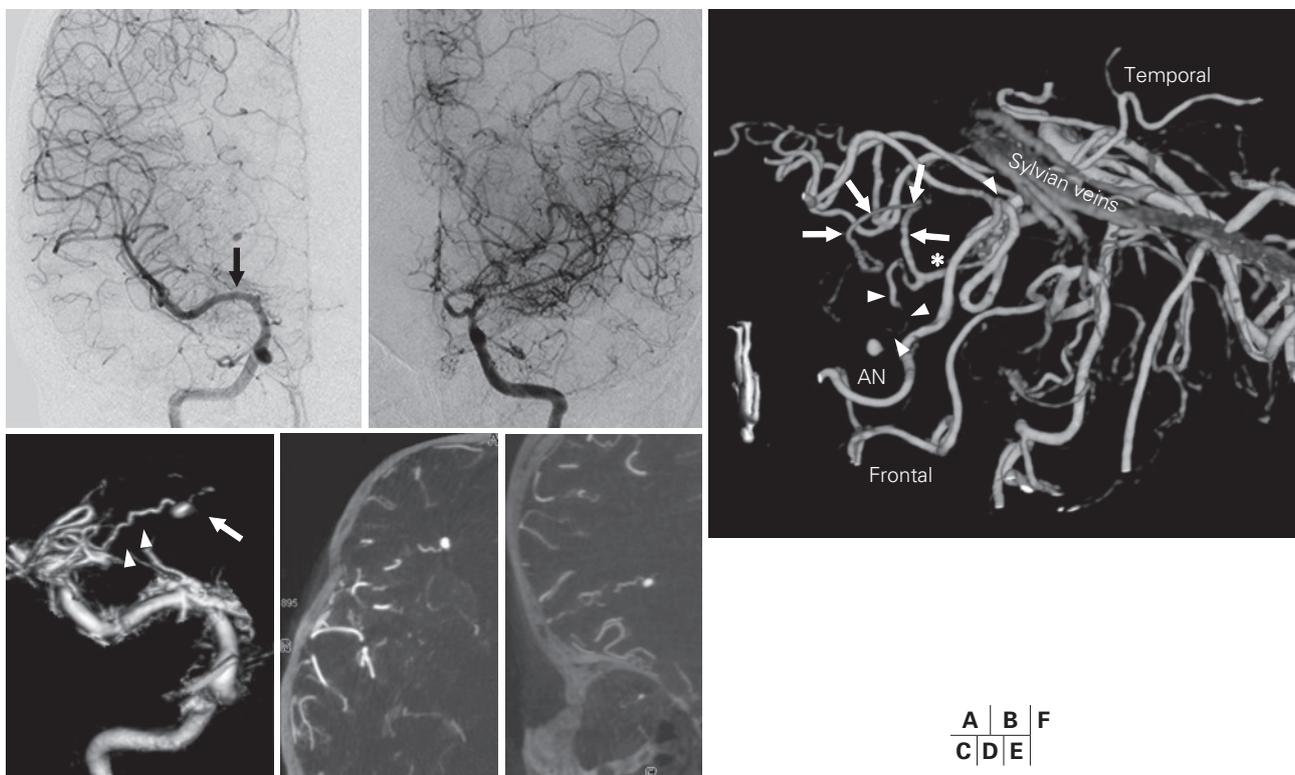


Fig. 2 Digital subtraction angiography (DSA) on admission and day 15.
A, B: Internal carotid arteries (ICAs, right and left). Right anterior cerebral artery (ACA) was not visualized. Black arrow: the ruptured aneurysm in the right frontal lobe.
C: 3D-DSA of the right ICA. Arrow: ruptured aneurysm, arrowheads: abnormal collateral vessels originate from the M3 portion of the right middle cerebral artery (MCA).
D, E: Cone-beam CT showing the aneurysm (axial and coronal).
F: 3D-DSA (operative view) obtained on day 15. Arrows: target cortical artery that runs in the sulcus of the frontal operculum, arrowheads: parent artery of the aneurysm, asterisk: common trunk originating from the M3 portion in the Sylvian fissure.
 AN: aneurysm

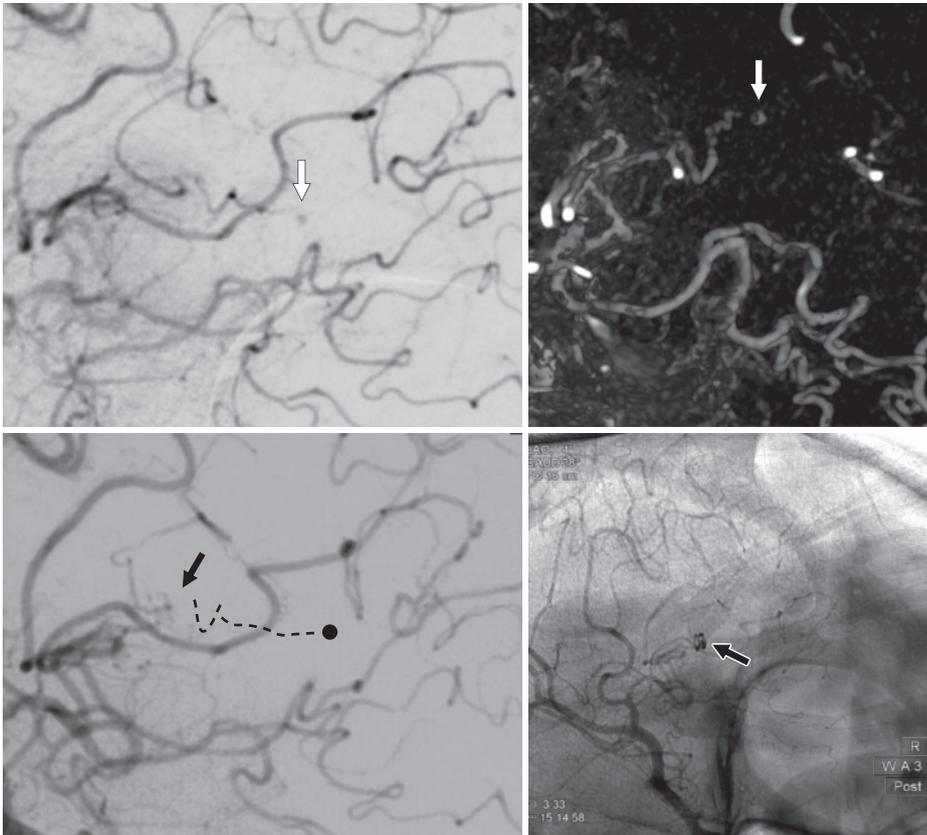
入血管に到達可能と判断した。さらに、今後の虚血合併症予防、側副血行路新生に伴う再出血予防のために、右ACA領域への血行再建術を付与する方針とした。

手術(発症後20日)

高画質の術中DSAのためにハイブリッド手術室を用いた。手術支援に磁場式 navigation (Medtronic Stealth Station S7, Medtronic; Minneapolis, MN, USA) を使用した。全身麻酔下でDSAにより瘤造影を確認したのち(Fig. 3A, B)、頭部を左に60度回旋し固定した。EDASの直線状皮切痕直上をSTA頭頂枝を温存しつつ切開、続いて前頭部に皮切を延長して、①右前頭側頭開頭および②右前頭開頭を行った(Fig. 4A)。①の術野で、前頭葉弁蓋部の目標皮質枝をnavigationで確認し、脳溝を鋭的に開きながらこの枝を深部へ追跡した。脳表より15mmの深さで脳溝底に達し、シルビウス裂側からくる動脈がこの皮質枝と動脈瘤

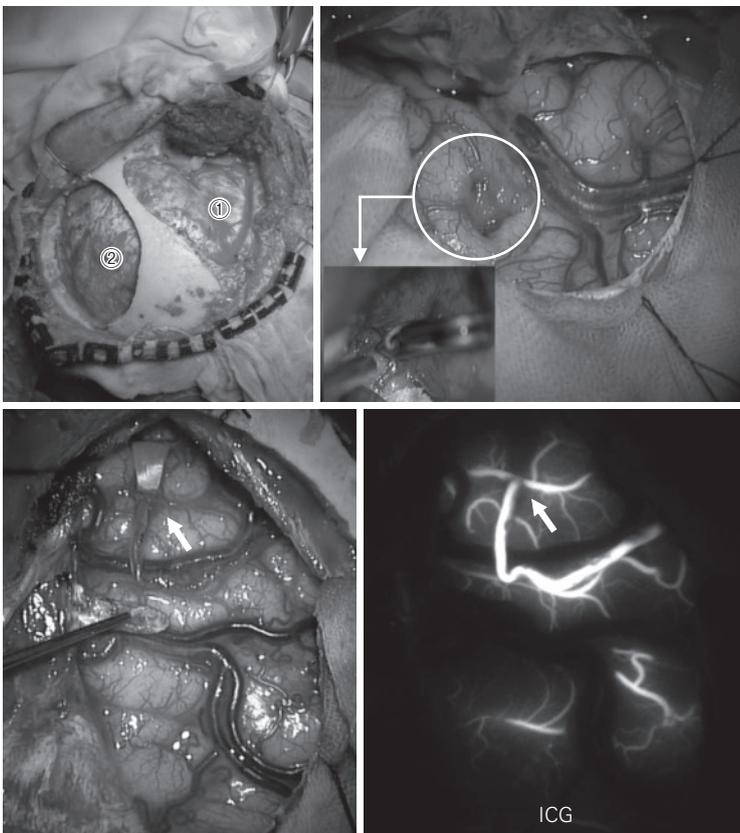
への流入血管に分岐する地点を確認、流入血管をSugita II mini clipで遮断した(Fig. 4B)。流入血管に細い血管が並走していたが、重要穿通枝の可能性は低いことから同時に遮断した。インドシアニングリーン蛍光血管撮影で流入血管の血流消失を、また術中DSAで動脈瘤造影消失を確認した(Fig. 3C, D)。続いて頭部回旋を30度に変更し、②の術野でACA皮質枝を確認した。STA前頭枝を皮弁内側から剝離し、11-0糸10針でSTA-ACA bypassを行った(Fig. 4C, D)。最後に翻転硬膜を大脳半球開裂に敷き込み、有茎骨膜弁を硬膜縁に縫合して間接 bypass とした。術後経過は順調でMRI上新規梗塞、出血を認めず、術後11日目に神経学的脱落症状なく自宅へ退院した。

治療3カ月後のDSAでは動脈瘤は描出されず、ACA領域への良好なbypass血流が確認された(Fig. 5)。治療9カ月後の現在、無症状で外来観察中である。



A	B
C	D

Fig. 3 Intraoperative digital subtraction angiography (DSA). **A, B:** Right internal carotid artery (ICA) before clipping. Arrow: ruptured aneurysm. **C, D:** Right ICA after clipping. Arrows: clipping point, broken line and circle: parent artery and ruptured aneurysm after clipping.



A	B
C	D

Fig. 4 Intraoperative photographs. **A:** Right frontotemporal craniotomy (①) and medial frontal craniotomy (②). **B:** Target sulcus (circle) and parent artery clipping. **C, D:** Superficial temporal artery-anterior cerebral artery (STA-ACA) anastomosis (arrows).

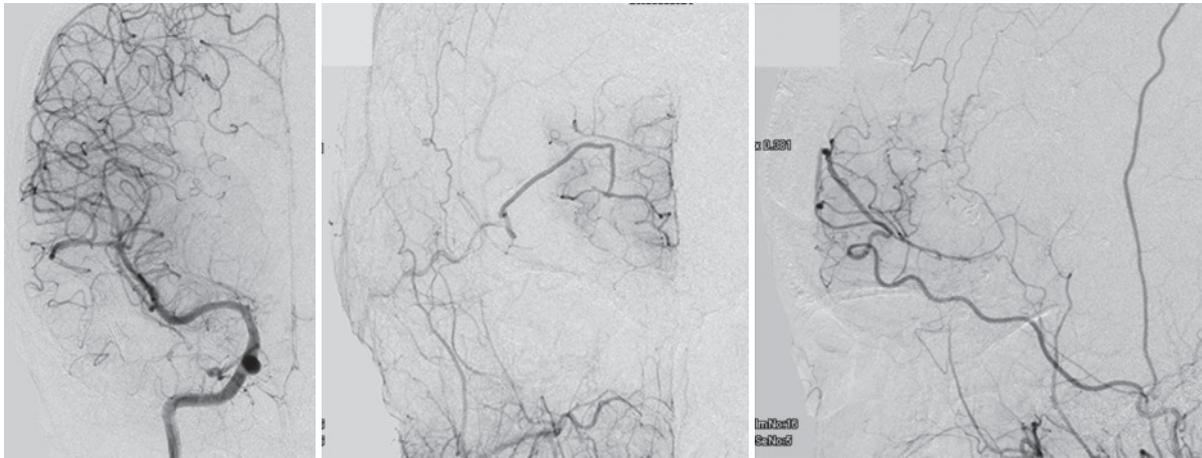


Fig. 5 Postoperative digital subtraction angiography (DSA) obtained 3 months after surgery. **A**: Right internal carotid artery (ICA). The aneurysm is not detected. **B, C**: Right external carotid artery (ECA). Blood supply from the superficial temporal artery-anterior cerebral artery (STA-ACA) bypass to the frontal lobe is shown.

考 察

もやもや病における頭蓋内出血は、側副血行路網への長期血行力学的負荷が原因とされるが⁸⁾、ときに側副血行路上に出血源としての動脈瘤が確認される⁹⁾。ただ、これらの多くはレンズ核線条体動脈や脈絡叢動脈上の病変であり⁵⁾、本症例のようなMCA M3部から前頭葉実質内を貫通しACA領域へ向かう側副血行路の瘤破裂報告はわれわれが渉猟するかぎり見当たらず、まれな例と考えられる。

側副血行路上の破裂動脈瘤に対する治療法は controversial である。Japan Adult Moyamoya Trialは、出血型もやもや病における直接血行再建術の再出血率予防効果を示したが⁸⁾、側副血行路上の脳動脈瘤は主たる検討対象ではない。保存的治療は選択肢の1つであり、Kawaguchiら⁵⁾は側副血行路上の動脈瘤が平均7.1カ月の保存的治療で消失したことを報告している。一方で、保存的治療中の再破裂報告もあり²⁾、保存的治療には一定の限界がある。

bypass手術により動脈瘤が消失したとする報告は多い⁴⁾⁷⁾¹⁰⁾。しかし、効果発現には一定期間を要すると推定され、急性期ないし亜急性期再出血予防の意義は不詳である。動脈瘤の直接治療としてはネッククリッピング術、流入血管遮断術、血管内塞栓術などが報告される¹⁾³⁾。ただ、ネッククリッピング術については仮性瘤の可能性や皮質切開を要するなどの問題があり、適応例は限定される³⁾⁶⁾。流入血管遮断術は有効とされ、開頭、血管内治療いずれも動脈瘤の消失報告がある¹⁾³⁾。ただし、細径の末梢血管へのカニューレーションは容易でなく、血管内治療の適応には限界がある¹⁾。

本症例では、発症15日の経過で動脈瘤の自然消失が得られなかったため外科治療に踏み切った。流入動脈遮断術のみを行った場合は、ACA領域の虚血病態の増悪をきたす可能性があると考えられたため、navigation支援下での経脳溝的流入血管遮断術とACA領域への血行再建術を一体的に実施し、良好な結果が得られた。有効性検証には長期のフォローアップが必要であるが、同様の事例に対して検討すべき1つの選択肢と考えられた。

結 論

MCA M3部からACA領域に向かう側副血行路上に生じた、まれな実質内破裂動脈瘤症例を報告した。navigation支援下の径脳溝アプローチにより、脳実質切開なしに流入血管遮断を行い動脈瘤陰影を消失させた。同時に、発生原因であるACA領域虚血に対するSTA-ACA bypass + 間接血行再建を行い、術後の虚血合併症予防、動脈瘤新生予防とした。

著者全員は日本脳神経外科学会へのCOI自己申告を完了しています。本論文の発表に関して開示すべきCOIはありません。

文 献

- 1) Chalouhi N, Tjoumakaris S, Gonzalez LF, *et al*: Onyx embolization of a ruptured lenticulostriate artery aneurysm in a patient with moyamoya disease. *World Neurosurg* 80: 436. e7-e10, 2013
- 2) Hamada J, Hashimoto N, Tsukahara T: Moyamoya disease with repeated intraventricular hemorrhage due to aneurysm

- rupture. Report of two cases. *J Neurosurg* 80: 328-331, 1994
- 3) Kalani MY, Martirosyan NL, Nakaji P, *et al*: Microsurgical clipping of an unruptured lenticulostriate aneurysm. *J Clin Neurosci* 19: 1578-1580, 2012
 - 4) Kanamori F, Takasu S, Ota S, *et al*: Prevention of the rerupture of collateral artery aneurysms on the ventricular wall by early surgical revascularization in moyamoya disease: report of two cases and review of the literature. *World Neurosurg* 109: 393-397, 2018
 - 5) Kawaguchi S, Sakaki T, Morimoto T, *et al*: Characteristics of intracranial aneurysms associated with moyamoya disease. A review of 111 cases. *Acta Neurochir (Wien)* 138: 1287-1294, 1996
 - 6) Kim JH, Kwon TH, Kim JH, *et al*: Intracranial aneurysms in adult moyamoya disease. *World Neurosurg* 109: e175-182, 2018
 - 7) Kuroda S, Houkin K, Kamiyama H, *et al*: Effects of surgical revascularization on peripheral artery aneurysms in moyamoya disease: report of three cases. *Neurosurgery* 49: 463-467, 2001
 - 8) Miyamoto S, Yoshimoto T, Hashimoto N, *et al*: Effects of extracranial-intracranial bypass for patients with hemorrhagic moyamoya disease: results of the Japan Adult Moyamoya Trial. *Stroke* 45: 1415-1421, 2014
 - 9) 宮本 享, 高橋 淳, 舟木健史: 出血発症成人もやもや病とその外科治療—Japan Adult Moyamoya Trial の結果を中心に. *脳外誌* 25: 52-58, 2016
 - 10) Ni W, Xu F, Xu B, *et al*: Disappearance of aneurysms associated with moyamoya disease after STA-MCA anastomosis with encephaloduro myosynangiosis. *J Clin Neurosci* 19: 485-487, 2012