

症例報告

未破裂脳動脈瘤を伴ったPersistent Primitive Proatlantal Intersegmental Arteryの一例

浜松赤十字病院 脳神経外科
澤下光二, 竹原誠也, 土屋直人

要 旨

脳出血で発症し、脳血管撮影にて稀な胎生期遺残血管と脳動脈瘤を認めた症例を経験したので報告する。症例は60歳男性で、右片麻痺、気分不快を訴え来院した。頭部CTで左尾状核出血を認め、保存的に加療した。脳血管撮影を行ったところ、左総頸動脈撮影にて、第3頸椎の高さで外頸動脈から分枝し、大後頭孔から頭蓋内に入り、V4 segmentで椎骨動脈に吻合する血管を認めた。この血管は、その走行の特徴からpersistent primitive proatlantal intersegmental arteryと診断した。右頸動脈撮影にて前交通動脈瘤を認めたが、これは経過観察とした。

胎生期には、頸動脈系と椎骨脳底動脈系との間に吻合が存在し、これらが残存したものが、胎生期遺残血管である。胎生期遺残血管は、偶発的に発見されることが多く、それ自体は臨床症状を呈さないことが多いが、高頻度で動脈瘤が合併するため注意を要する。

Key words

Persistent Primitive Proatlantal Intersegmental Artery, 胎生期遺残血管, 未破裂脳動脈瘤

1. はじめに

胎生期においては、頸動脈系と椎骨脳底動脈系との間に吻合が存在する。これらの吻合血管が、遺残動脈として偶発的に脳血管撮影にて発見されることがあるが、今回われわれは稀な胎生期遺残血管の一つであるpersistent primitive proatlantal intersegmental artery (以下PPPIAと略す) と未破裂脳動脈瘤を有する症例を経験したので、ここに文献的考察を加え報告する。

2. 症 例

患者: 60歳, 男性

既往歴: 10年前に腰椎椎間板ヘルニアの手術を受けている。また高血圧を指摘されていたが、特に加療されていなかった。

現病歴: 1999年7月26日工作中に、突然全身の脱

力と顔面蒼白をきたした為、救急車にて来院した。入院時所見: 血圧141/94mmHg, 脈拍105/min, 血液生化学検査にて異常を認めなかった。

意識レベルはGCS12であった。軽い右片麻痺を認めたが、感覚障害は認めなかった。脳神経に有意な異常所見はなかった。頭部CTにて左尾状核に約3mlの出血を認めた(図1)。

入院後経過: 血圧コントロールを主体とした保存的治療を行ない、翌日には意識清明となり神経学的には軽い右片麻痺を認めるのみとなった。早期からリハビリテーションを施行し、第5病日頃までには独歩可能となり、麻痺は、ほぼ完全に回復した。第18病日に血管性病変の精査目的にて、脳血管撮影を行なった。左総頸動脈撮影を行なうと、内頸動脈と椎骨脳底動脈が同時に造影された(図2)。そこで頸部側面部で左総頸動脈撮影を施行すると、第3頸椎の高さで外頸動脈から分枝し、大後頭孔から頭蓋内に入りV4 segmentで椎骨動脈に吻合する異常血管を認めた(図3, 4)。ま

た左椎骨動脈V4 segmentより中枢側の椎骨動脈は、左鎖骨下動脈撮影にて造影されなかった(図5)。以上の所見からこの異常血管は、PPPIAと診断した。右椎骨動脈には、異常を認めなかったが、右頸動脈撮影にて前交通動脈瘤を認めた(図6)。左尾状核出血の原因と成りうる血管性病変は指摘できなかった。前交通動脈瘤については、患者からインフォームドコンセントを得たうえで経過観察とした。

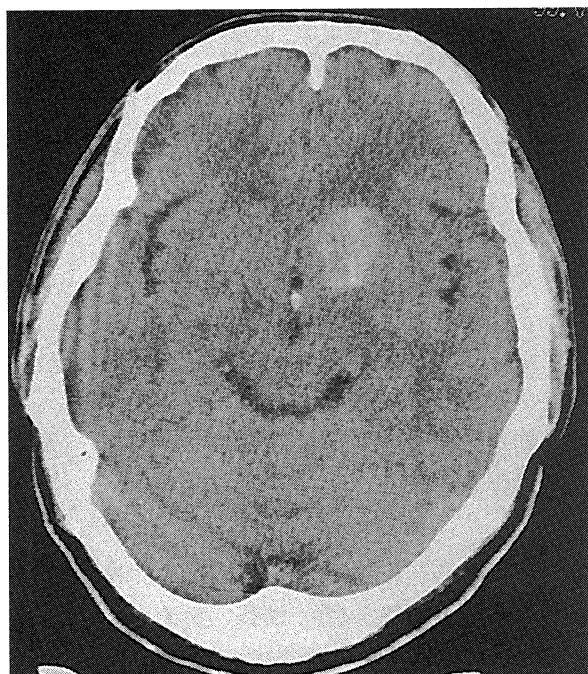


図1

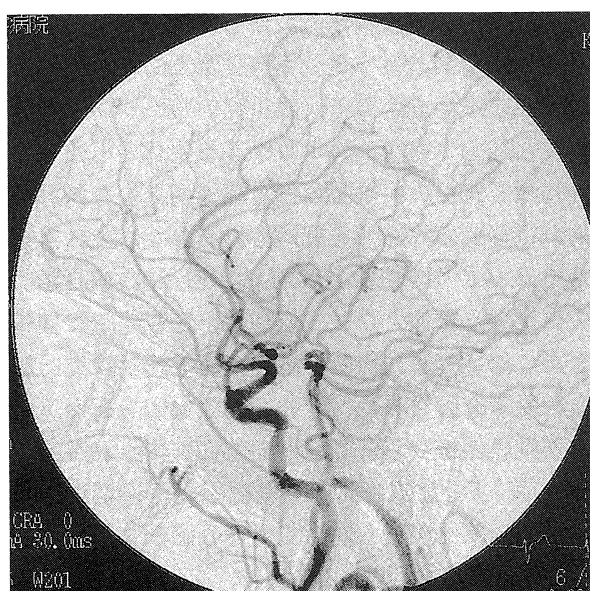


図2

3. 考 察

PPPIAは、胎生期に存在する頸動脈系と椎骨脳底動脈系の吻合血管が遺残したものである。Padgetらの詳細な報告によると、4 mm胎芽期には、頸動脈系と椎骨脳底動脈系との間にprimitive



図3



図4

trigeminal artery, primitive otic artery, primitive hypoglossal artery (PHA), primitive proatlantal artery, の4本の吻合血管が存在する¹⁾。これら4本の血管は, 16mm胎芽期ころまでに完全に消失するが, 何らかの原因で椎骨脳底動脈系への血液供給が阻害されると, 頸動脈系から吻合血管を介した血液循環が行なわれ, 遺残血管が生ずるといわれている。

PPPIAは, Lasjauniasが分類した proatlantal artery type1といわれる血管と同義の血管であるが, Lasjauniasらによるとこの血管は, 通常内頸動脈あるいは外頸動脈から分枝した後, 後方外側

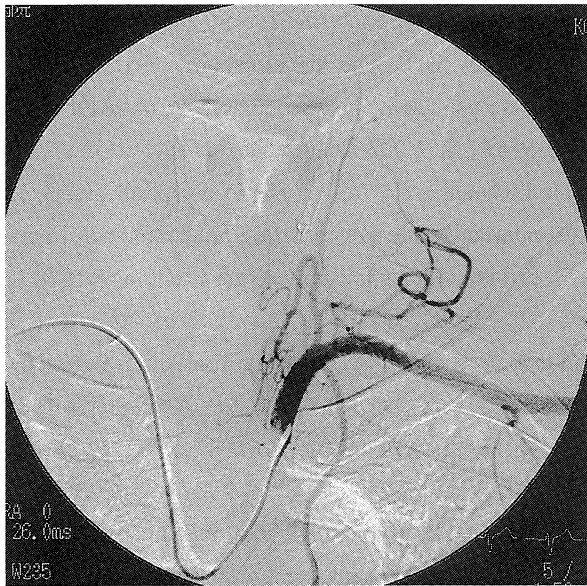


図5

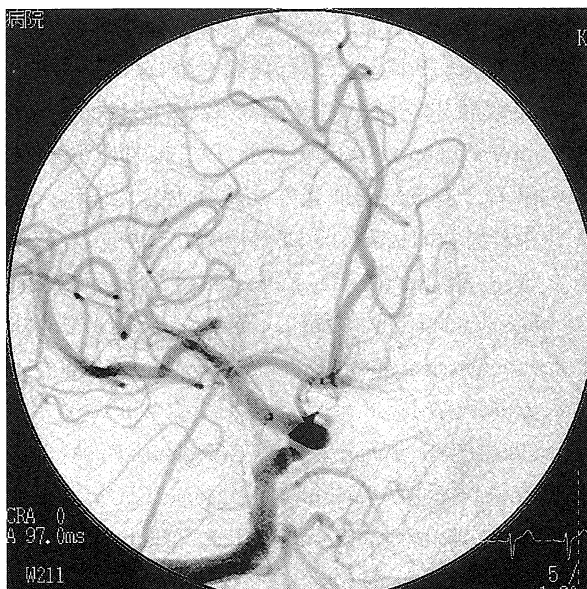


図6

表1 Persistent Primitive Proatlantal Intersegmental Artery報告例

報告者(報告年)	症例	原疾患	脳動脈瘤
Abe (1964)	6M	精神発達遅滞	なし
Conforti (1966)	25M	頭部外傷	なし
Lie (1968)	25M	頭部外傷	なし
Flynn (1968)	不明	くも膜下出血	右内頸動脈瘤
Hutchinson (1970)	53M	慢性硬膜下血腫	なし
二村 (1970)	71M	頭部外傷	なし
Bloch (1974)	40M	頭痛	なし
伊藤 (1975)	55M	脳梗塞	なし
Rao (1975)	23M	脳腫瘍	なし
Pinstein (1976)	61M	脳腫瘍	なし
Anderson (1976)	61M	慢性硬膜下血腫	なし
朽名 (1977)	53M	脳腫瘍	なし
内藤 (1979)	32M	中脳水道狭窄症	なし
Suzuki (1979)	7F	水頭症	なし
大上 (1980)	49M	頭痛	前交通動脈瘤
村山 (1981)	74F	脳梗塞	なし
Tsukamoto (1981)	49M	くも膜下出血	前交通動脈瘤
Tanaka (1983)	69F	脳梗塞	三叉動脈瘤
佐藤 (1985)	70F	くも膜下出血	前交通動脈瘤
田中 (1987)	69M	一過性脳虚血発作	なし
Lui (1987)	48F	脳腫瘍	なし
高橋 (1989)	57M	脳出血	なし
Kurose (1990)	74F	くも膜下出血	左中大脳動脈
奥田 (1991)	48F	けいれん発作	なし
石黒 (1991)	65M	脳梗塞	なし
鬼塚 (1991)	19F	けいれん発作	なし
Bahçi (1993)	55F	脳梗塞	なし
原田 (1994)	73F	くも膜下出血	左内頸動脈瘤
原田 (1994)	29M	一酸化炭素中毒	両側内頸動脈瘤
佐々木 (1995)	55F	脳腫瘍	なし
大江 (1995)	66F	脳梗塞	なし
田之畑 (1997)	57M	不明	なし
野中 (2001)	44M	くも膜下出血	脳底動脈瘤
present case (2001)	60M	脳出血	前交通動脈瘤

に向かいながら上行し, 後頭骨と環椎との間を前方内側に向かい大後頭孔に入った後椎骨動脈(V4 segment)に吻合する²⁾。またPPPIAと同側の椎骨動脈は低形成または無形成であることが多い。PPPIAとPHAとの鑑別が問題となるが, PHAが第1頸椎レベルで内頸動脈から分枝するのに対してPPPIAはより低いレベル, すなわち第2または第3頸椎レベルにて分枝する。またPHAが舌下神経管を通して頭蓋内に入るのに対して, PPPIAは大後頭孔から頭蓋内に入って行く。この鑑別には軸位での脳血管撮影が有用であるといわれている³⁾。

本症例にみられた異常血管は, これらの所見に合致すると考えられPPPIAと診断した。PPPIAはその他の遺残血管に比べても稀なものであり, これまでに入手できた文献上では自験例を含め34例が報告されているにすぎない³⁾⁻³⁴⁾。34例のうち男性は20例, 女性は13例, 不明が1例であった。左側PPPIAが26例, 右側が7例, 両側が1例であっ

た(表1). 左側に多い傾向があるが理由は不明である.

PPPIAは多くの症例で無症候性であり, 脳卒中等の中枢神経系疾患における脳血管撮影で, 偶然発見されている. 本例においても, 左尾状核出血とは無関係に, 偶然発見されたと考えている. しかし少数ではあるが, PPPIAが症候性であった例も存在する. Bahciらはtop of basilar artery syndromeを発症し, 脳血管撮影にて左側PPPIAを認めた55歳の女性を報告している⁴⁾. この症例で, Bahciらは左総頸動脈にみられた動脈硬化性プラークから生じた塞栓が, PPPIAを経由して椎骨脳底動脈系に入りtop of basilar artery syndromeを発症したとしている. また田中らも総頸動脈分岐部の潰瘍性病変と同側のPPPIAを合併し, 椎骨脳底動脈系のTIAを繰り返した男性例を報告している⁵⁾. 総頸動脈分岐部の血栓内膜剥離術を施行したところ, TIAを起こさなくなったことより田中らは, 潰瘍性病変部で生じた塞栓が, PPPIAを介して椎骨脳底動脈系に流入した為TIAを生じたものと結論している.

また胎生期遺残血管には, 動脈瘤が高率に合併することが知られている³⁰⁾. 今回文献的に検索したPPPIA34例中10例に動脈瘤の合併を認め, 動脈瘤の保有率は29.4%と計算された. Ujiieらは, 脳血管撮影による偶発的未破裂動脈瘤の発見率が2.3%であったと報告している³⁵⁾. この値と遺残血管における動脈瘤の保有率を有する症例に動脈瘤における動脈瘤の保有率を単純に比較できないが, 少なくとも遺残血管を有する症例に動脈瘤が多く合併する傾向があるとはいえる. 本例においては, 前交通動脈瘤が発見されたが, その成因においてPPPIAが何らかの役割を果たしていたかは, 不明と言わざるを得ない.

今回文献的に検索できたPPPIAに合併した動脈瘤の内訳は, 前交通動脈瘤4例(自験例含む), 内頸動脈瘤3例, 中大脳動脈瘤1例, 脳底動脈先端部動脈瘤1例, 遺残性三叉動脈瘤1例であった. 一般的な動脈瘤の好発部位とはほぼ同様であった. PPPIAなどの遺残血管が動脈瘤発生に, 直接の関係があるか否かは不明であるが, 遺残血管を持つ症例に動脈瘤が多く認められることには, 十分注

意する必要がある.

4. 結 語

- 1) 稀な胎生期遺残血管であるPPPIAを有し, 脳動脈瘤を合併した脳出血症例を経験したので報告した.
- 2) 胎生期遺残血管を有する症例においては, 脳動脈瘤が高率に合併すると考えられ, 遺残血管を発見した際には注意を要する.

文 献

- 1) Padget DH. The development of the cranial arteries in the human embryo. *Contr Embryol* 1948; 32: 205-262.
- 2) Lasjaunias P, et al. The occipital artery; anatomy, normal arteriographic aspect, embryological significance. *Neuroradiology* 1978; 15: 31-37.
- 3) 高橋伸一郎, 伊藤良則. Proatlantal intersegmental arteryを伴った高血圧性脳内出血の1例. *Neurol Med Chir(Tokyo)* 1989; 29: 146-150.
- 4) Bahci, YZ. Persistent primitive proatlantal intersegmental artery (proatlantal artery I) results in top of basilar syndrome. *Stroke* 1993; 24: 2114-2117.
- 5) 田中秀樹, 高橋宏, 石島武一ほか. 総頸動脈分岐部に潰瘍性病変を有し, Proatlantal intersegmental artery を介して椎骨脳底動脈系の一過性脳虚血発作を繰り返した1例. *脳神経外科* 1987; 15: 341-347.
- 6) Abe K, Suzuki T. Persistence of embryonic carotid-vertebro basilar anastomosis. *Folia Psychiatrica et Neurologica Japonica* 1964; 18: 257-276.
- 7) Conforti P, Armenish B, Galligione F. Anomalous carotid vertebral anastomosis: primitive cervical intersegmental artery. *Neurochirurgia* 1966; 9: 99-106.
- 8) Lie TA. Primitive hypoglossal artery in con-

- genital anomalies of the carotid arteries. Amsterdam : Excerpta Media ; 1968.
- 9) Flynn RE. External carotid origin of the dominant vertebral artery. J Neurosurg 1968 ; 29 : 300-301.
- 10) Hutchinson NA, Miller JDR. Persistent proatlantal artery. J Neurol Neurosurg Psychiat 1970 ; 33 : 524-527.
- 11) 二村敦朗, 齋藤晃, 野木村昭平ほか. External carotid-basilar anastomosis. 脳と神経 1970 ; 22 : 101-103.
- 12) Bloch S, Danziger J. Proatlantal intersegmental artery. Neuroradiology 1974 ; 7 : 5-8.
- 13) 伊藤建次郎, 川口進, 岩淵隆. External carotid-basilar anastomosisの一例. 脳神経外科 1975 ; 3 : 429-434.
- 14) Rao TS, Sethi Pk. Persistent proatlantal artery with carotido-vertebral anastomosis. J Neurosurg 1975 ; 43 : 499-501.
- 15) Pinstein ML, Gerald B. Anomalous communication of the external carotid and vertebral arteries : persistence of the proatlantal artery. Radiology 1976 ; 118 : 626-623.
- 16) Anderson RA, Sondheim FK. Rare carotid-vertebrobasilar anastomosis with the differentiation between proatlantal and hypoglossal arteries. Neuroradiology 1976 ; 11 : 113-118.
- 17) 朽名誠, 安井信之, 谷定泰ほか. External carotid-vertebral anastomosis. 臨床放射線 1977 ; 22 : 601-604.
- 18) 内藤正志, 北岡保, 富原健司ほか. Persistent primitive proatlantal intersegmental arteryの1例. 脳と神経 1979 ; 31 : 265-269.
- 19) Suzuki S, Nobuchi T, Itoh I, et al. Persistent proatlantal intersegmental artery and occipital artery originating from internal carotid artery. Neuroradiology 1979 ; 17 : 105-109.
- 20) 大上庄一, 小谷了一, 岩崎聖ほか. 脳動脈瘤を伴ったpersistent primitive proatlantal intersegmental artery の1例. 臨床放射線 1980 ; 25 : 855-858.
- 21) 村山享一, 大脇潔, 上田建志ほか. Persistent primitive first cervical intersegmental artery (Proatlantal artery II) の1例. 脳と神経 1981 ; 32 : 25-30.
- 22) Tsukamoto S, Hori Y, Utsumi S, et al. Proatlantal intersegmental artery with absence of bilateral vertebral arteries. J Neurosurg 1981 ; 54 : 122-124.
- 23) Tanaka Y, Hara H, Momose G, et al. Proatlantal intersegmental artery and trigeminal artery association with an aneurysm. J Neurosurg 1983 ; 59 : 520-523.
- 24) 佐藤博雄, 藤原悟, 小田辺一紀ほか. 脳動脈瘤を伴ったpersistent primitive intersegmental artery (proatlantal artery I) の1例. 脳神経外科 1985 ; 13 : 117-121.
- 25) Lui CC, Liu YH, Wai YY, et al. Persistence of both proatlantal arteries with absence of vertebral arteries. Neuroradiology 1987 ; 29 : 304-305.
- 26) Kurose K, Kishi H, Nishijima Y. Type 2 proatlantal artery associated with a ruptured aneurysm. Neurol Med Chir (Tokyo) 1990 ; 30 : 191-193.
- 27) 奥田文悟, 宇高不可思. 痙攣重積状態を伴ったproatlantal intersegmental artery の1例. 臨床神経学 1991 ; 31 : 87-89.
- 28) 石黒雅敬, 相馬勤, 土屋博美ほか. 脳梗塞にて発症したPersistent primitive intersegmental artery の1例. 脳神経外科 1991 ; 19 : 559-563.
- 29) 鬼塚圭一朗, 栗本昌生, 遠藤俊朗ほか. 椎骨動脈のduplicate origin を合併した Persistent primitive first cervical intersegmental artery (proatlantal artery II) の1例. 臨床放射線 1991 ; 36 : 1707-1710.
- 30) 原田薫雄, 魚住徹, 栗栖薫ほか. 遺残動脈を有する脳血管障害症例の検討. 脳神経外科 1994 ; 22 : 1153-1158.
- 31) 佐々木理桂子, 竹川鉦一, 淀野啓ほか. 外頸動脈から分岐したpersistent primitive proatlantal intersegmental arteryの1例. 日本画像

- 医学学誌 1995 ; 14 : 277-282.
- 32) 大江洋史, 数井誠司, 成富博章ほか. 橋梗塞で発症した胎生期遺残動脈による外頸動脈椎骨動脈吻合. 神経内科 1995 ; 43 : 458-460.
- 33) 田之畑一則. 脳, 頭頸部血管のノーマルバリエーション. 臨床画像 1997 ; 13 : 944-946.
- 34) 野中裕康, 中谷圭, 谷川原徹哉ほか. 脳底動脈瘤を伴ったpersistent primitive proatlantal intersegmental artery の1例. 脳神経外科 2001 ; 29 : 775-779.
- 35) Ujiie H, Sato K, Onda H et al. Clinical analysis of incidentally discovered unruptured aneurysms. Stroke 1993 ; 24 : 1850-1856.