

# 初回脳血管撮影で出血源不明であった クモ膜下出血の2例

静岡赤十字病院 脳神経外科

林 俊行 山田 素行 篠田 純  
安心院 康彦

**要旨：**我々は初回脳血管撮影にて脳動脈瘤の描出されないクモ膜下出血に対して複数回の再検査を行い、脳動脈瘤を発見し、再出血を起こさずクリッピング術を行うことの出来た2例を経験した。症例1は51歳女性である。頭痛と意識障害で発症したクモ膜下出血だが、2回目までの脳血管撮影では出血源は明らかでなく、26日目に行った3回目の脳血管撮影にて左内頸動脈後交通動脈瘤が描出され、翌日開頭クリッピング術を行った。経過中、再出血、脳血管攣縮は認めず、意識清明にて独歩退院した。症例2は43歳女性である。重度意識障害で発症したクモ膜下出血で発症日に行った脳血管撮影にて右前大脳動脈末梢に動脈瘤を確認し、同日開頭クリッピング術を施行した。29日目に行った脳血管撮影にて前交通動脈瘤を認め、48日目に再度開頭クリッピング術を行った。経過中再出血は認めず、手術所見より、前交通動脈瘤が出血源と考えられた。その後、合併症の治療を行った後、転院となった。

上記の2例を、初回脳血管撮影で動脈瘤が描出されない場合の原因、及びその後の検査の進め方、についての文献的考察と合わせて報告する。

**Key words：**クモ膜下出血，出血源不明，脳血管撮影

## I. はじめに

非外傷性のクモ膜下出血の原因は動脈瘤や動静脈奇形、モヤモヤ病、脳腫瘍など多岐にわたり、脳血管撮影により出血源が確定されることが多い。しかし、クモ膜下出血の4%~14%は初回の脳血管撮影で出血源が不明であるといわれており<sup>1-6)</sup>、その中には何らかの原因により脳血管撮影で描出されない破裂脳動脈瘤が含まれる。

今回我々は、クモ膜下出血に対し初回の脳血管撮影にて出血源を同定できなかったが、脳血管撮影の再検を行うことにより破裂動脈瘤を確認し、再出血なく動脈瘤のクリッピングをし得た2症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

## II. 症例呈示

症例1：51歳，女性

主訴：頭痛，意識障害

家族歴：特記すべきものなし

既往歴：高血圧症（10年前に指摘されていたが投薬は受けず。）

現病歴：平成■年■月■日激しい頭痛とともに気の遠くなる感じを側にいた夫に訴え、立っていらなくなり、救急車にて当院に搬送された。

来院時神経学的所見：意識レベルはJapan Coma Scale (JCS) II-20~30, Glasgow Coma Scale (GCS) 13であった。強い頭痛と、嘔吐を認めた。両側眼底に乳頭浮腫を認めた。瞳孔は左右同大3mmで対光反射は両側、直接間接ともに迅速であった。四肢に明らかな麻痺は認めなかった。その他、神経学的には明らかな異常を認めなかった。

血液生化学的検査所見：white blood cell (WBC) 5800/ $\mu$ l, red blood cell (RBC) 426 x 10<sup>4</sup>/ $\mu$ l, hemoglobin (Hb) 10.0 g/dl, platelet (PLT) 20.3 x 10<sup>4</sup>/ $\mu$ l, activated partial thromboplastin time (APTT) 25 sec, prothrombin time-international normalized ratio (PT-INR) 1.14, total protein (TP) 7.6 g/dl, glutamic oxaloacetic transaminase (GOT) 36 IU/L, glutamic pyruvic transaminase (GPT) 27 IU/L, lactic acid dehydrogenase (LDH) 233 IU/L, alkaline phosphatase (ALP) 221 IU/L,  $\gamma$ -glutamyl transpeptidase ( $\gamma$

-GTP) 64 IU/L, blood urea nitrogen (BUN) 7.8 mg/dl, creatinine (Cr) 0.4 mg/dl.  
 神経放射線学的所見: 来院直後の頭部単純 Computed tomography (CT) 所見にて Fisher group 3 のクモ膜下出血を認めた(図1). 翌日に撮影した脳血管撮影では明らかな脳動脈瘤, 血管攣縮等の所見は認めなかった(図2 a, b, c).



図1 症例1, 入院時頭部単純CT. クモ膜下出血を認める.

入院後経過: 原因不明のクモ膜下出血として, 安静維持と血圧管理に努めながら保存的に経過観察を行った. 入院翌日には意識レベルは JCS I-1 に回復した. 発症から12日目に再度脳血管撮影を施行するも, 脳動脈瘤, 脳血管攣縮等の所見は認めず, 引き続き経過観察を行った. 発症から26日目に3回目の脳血管撮影を施行し, 左内頸後交通動脈瘤を認めたため(図3 a, b, c), 9月27日に左前頭側頭開頭により, 左内頸後交通動脈瘤のクリッピング術を施行した. 手術所見からこの動脈瘤が破裂したものと考えられた(図4). 術後神経学的異常所見の出現なく, 発症37日目で神経学的所見を残さず退院となった.

症例2: 43歳, 女性

主訴: 意識障害

家族歴: 特記すべきものなし

既往歴: 特記すべきものなし

現病歴: 平成 〇〇年 〇月 〇日午前8時頃, 突然, 眼球的痛みと嘔吐を訴え自宅にて臥床した. 同日11時頃家人の呼びかけに反応しなくなり, 呼吸が不規則となったため救急車にて当院に搬送された.

来院時神経学的所見: 意識レベルは JCS III-200, GCS 4であった. 瞳孔は左3 mm, 右2 mmで対光反射は両側, 直接間接ともに緩慢であった. 除脳硬直様の肢位と, Cheyne-Stokes呼吸とを認めた.

血液生化学的検査所見: WBC 20060/μl, RBC 466

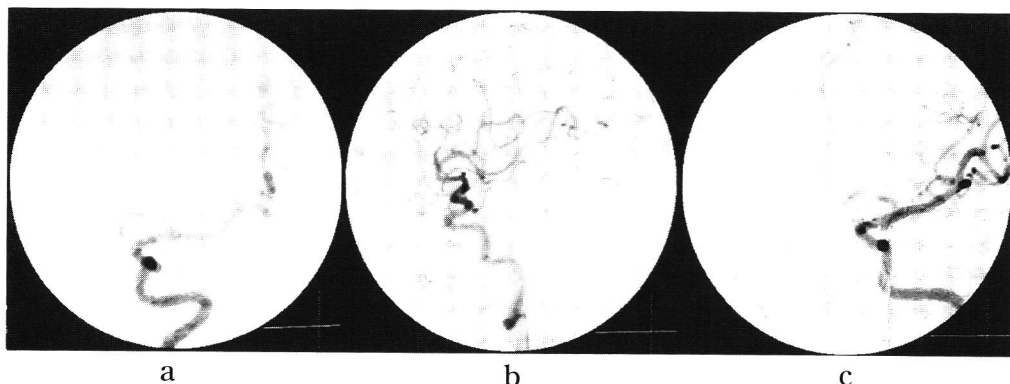


図2 症例1, 初回脳血管撮影.

a. 左内頸動脈撮影正面像.

b. 左内頸動脈撮影側面像.

c. 左内頸動脈撮影LAO斜位.

いずれも明らかな動脈瘤は認めない.

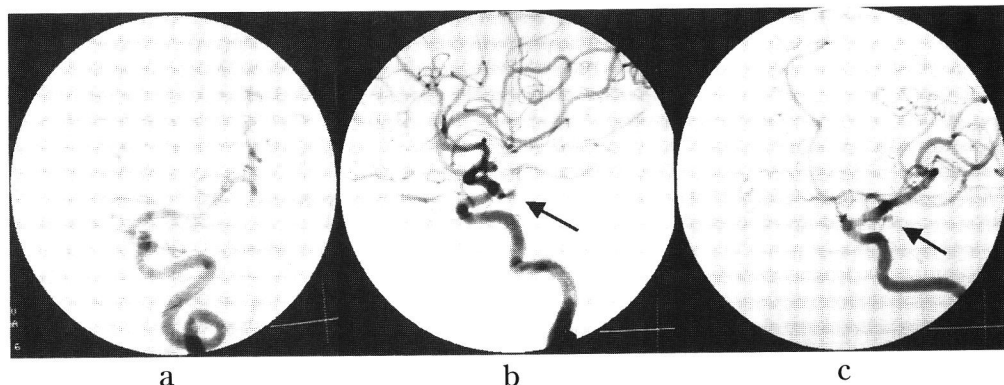


図3 症例1, 3回目脳血管撮影。  
 a. 左内頸動脈撮影正面像。  
 b. 左内頸動脈撮影側面像。  
 c. 左内頸動脈撮影LAO斜位。  
 矢印の部位に左内頸動脈瘤を認める。

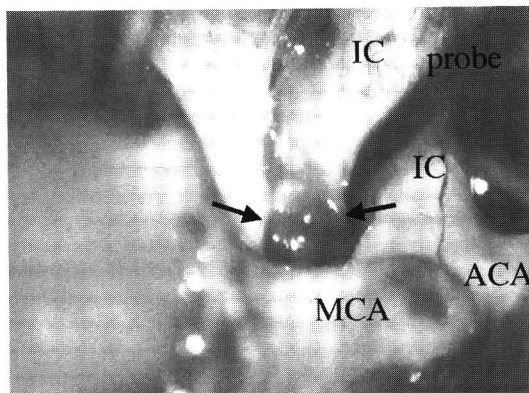


図4 症例1, 術中写真。破裂動脈瘤の所見である。  
 矢印は左内頸動脈後交通動脈瘤を示す。  
 IC：左内頸動脈。  
 ACA：左前大脳動脈。  
 MCA：左中大脳動脈。

$\times 10^4/\mu\text{l}$ , Hb 15.4 g/dl, PLT  $27.5 \times 10^4/\mu\text{l}$ , APTT 28 sec, PT (INR) 1.08, TP 7.8 g/dl, GOT 17 IU/L, GPT 13 IU/L, LDH 346 IU/L, ALP 230 IU/L,  $\gamma$ -GTP 12 IU/L, BUN 11.4 mg/dl, Cr 0.5 mg/dl.

神経放射線学的所見：来院直後の頭部単純CT所見でFisher group 4のクモ膜下出血を認めた(図5)。入院当日に行った脳血管撮影で右前大脳動脈末梢(A 2-A 3)に動脈瘤を認めた。明らかな血管攣縮は認めなかった(図6 a, b)。

入院後経過：発症当日、全身麻酔下に右拡大前頭側頭開頭により、右前大脳動脈末梢動脈瘤のクリッピング術、外減圧術、脳室ドレナージ術を施行した。術後意識レベルはJCS III-200, GCS E 1VTM 2で、対光反射は迅速であった。また除脳硬直様肢位を示した。頭蓋内圧管理、脳保護のため発症2日目から7日目まで平均3 mg/kg/min. でプロポフォールの持続投与を行った。プロポフォールを中止後、発症8日目から徐々に意識レベルは改善し、自発開眼がみられるようになった。症候性脳血管攣縮は認め

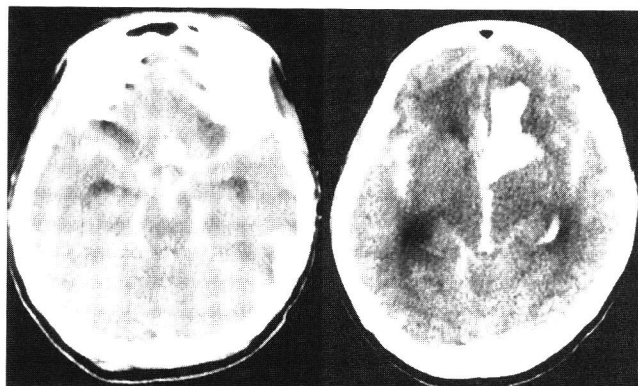


図5 症例2, 入院時頭部単純CT. クモ膜下出血と右前頭葉内側に血腫を認める.

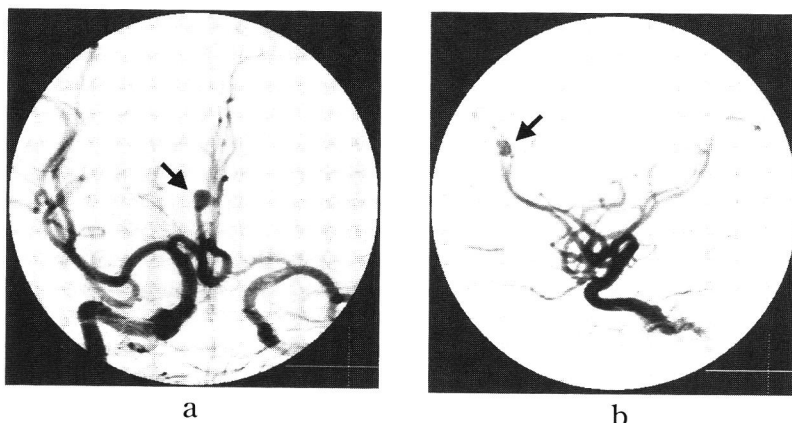


図6 症例2, 初回脳血管撮影.  
a. 右内頸動脈撮影正面像.  
b. 右内頸動脈撮影側面像.  
矢印の部位に前大脳動脈瘤を認める.

なかった。発症29日目クリッピングの確認のための脳血管撮影を施行したところ前大脳動脈末梢(A2-A3)動脈瘤は描出されなかったが、新に前交通動脈瘤を認めた(図7 a, b)。発症48日目に右外減圧部よりテリオナルアプローチにて前交通動脈瘤のクリッピング術を施行した。手術所見より、動脈瘤内の血栓化が疑われた(図8)。動脈瘤壁の病理標本では瘤内に器質化血栓の付着を認めた。その後、正常圧水頭症に対し2度のシャント術を行い、発症232日目にリハビリテーション目的に転院となった。転院時、意識レベルはJCS I-2, GCS E1V4M6, 両上下肢に manual muscle testing (MMT) にて2~3/5程度の運動麻痺を残した。

### III. 考 察

クモ膜下出血の中で初回脳血管撮影において出血源を確定出来ないものの頻度は諸家により4%~14%と報告されている<sup>1-6)</sup>。このような症例に対して脳血管撮影を繰り返す行うべきか否かについては議論のあるところで、Forsterら、Gilbertらのように再検査の必要はないとの報告もある<sup>2, 7)</sup>。

しかし、その他多くの報告では再検査、開頭手術、剖検などによって、初回脳血管撮影において出血源不明である症例の20%~50%に出血源が明らかになっている。どの報告においても出血源として明らかになるのは動脈瘤の場合が最も多く、再出血が起

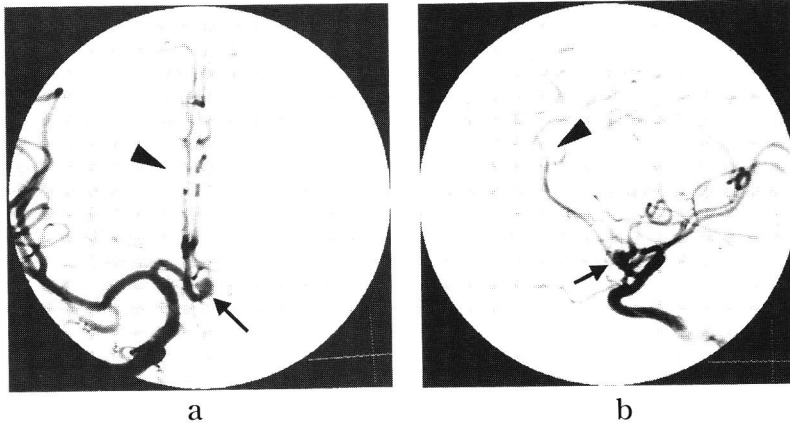


図7 症例2, 2回目脳血管撮影.

a. 右内頸動脈撮影正面像.

b. 右内頸動脈撮影側面像.

矢印の部位に前交通動脈瘤を認める.

また矢頭の部位では右前大脳動脈瘤がクリップされ消失している.

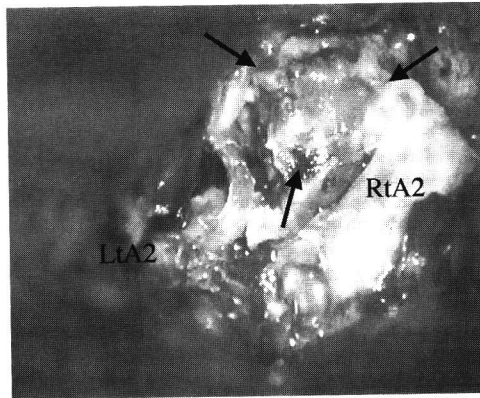


図8 症例2, 2回目右テリオナルアプローチで行ったクリッピングの術中写真.

矢印は前交通動脈瘤を示す. 血栓化動脈瘤が疑われる.

RtA 2: 右前大脳動脈 A 2部.

LtA 2: 左前大脳動脈 A 2部.

されば重篤な転帰となることを考えれば, 血管撮影の再試行は必須と考えられる.

次に再検査を行うのに適切な時期に関しては, 脳血管攣縮の時期にはたとえ動脈瘤を発見したとしても手術を待機することから脳血管撮影を行わないという方針がある<sup>9)</sup>. しかし, 一方で親血管の攣縮により描出される症例が存在することを考え, まず7日目頃に行い, それでも描出されない場合には, 瘤内

血栓の存在を考慮した上で, 血栓に対する線溶系の作用を期待し, 14~21日目に3回目を行う事を勧める報告がある<sup>9)</sup>.

今回の症例1では発症当日, 発症12日目に施行した脳血管撮影では破裂動脈瘤は同定されず, 発症26日目に行った3回目の脳血管撮影で初めて破裂動脈瘤は描出された. 症例2では発症当日の脳血管撮影では描出されていなかった破裂動脈瘤が発症29日

目に行った2回目の脳血管撮影で見つがっている。瘤内血栓の線溶を考慮すれば、より早期に脳血管撮影にて描出された可能性がある。

今回我々の症例では2回目、3回目の脳血管撮影で破裂動脈瘤が認められたが、3回目の脳血管撮影を行い出血源が確定されないとき、その後何回まで、どの時期に再検査をするべきかに関して明確に述べた報告は、我々の渉猟し得た範囲ではなかった。

症例2においてはたまたま再破裂はなかったが、CT(図5)上のクモ膜下出血の分布がA2-A3の動脈瘤にしてはやや低めであるという点と、術中所見から前交通動脈に破裂動脈瘤が潜在する可能性を考慮して術後管理を行うべきであったとも考えられる。

ところで、破裂脳動脈瘤があるにもかかわらず初回脳血管撮影において出血源不明とされる理由としては①脳血管造影、読影の不備、②脳血管攣縮の合併、③非常に小さい動脈瘤、④一過性の動脈瘤の血栓化、⑤破裂時の動脈瘤の破壊、⑥頭蓋内圧亢進、⑦動脈瘤のneckの狭小化、⑧血行動態の変化、などが挙げられている<sup>10-15)</sup>。

今回の症例1では明らかな脳血管攣縮は認めず、動脈瘤のサイズは標準的であり、また経過から、④、⑦、⑧のいずれかが疑われる。また症例2では手術所見から明らかに瘤内血栓が残存しており、④が最も疑われた。

以上の議論をふまえ、今後、初回脳血管撮影にて動脈瘤の発見されないクモ膜下出血の症例に対する方針としては、発症7日目前後での脳血管造影の再検査をおこない、それでも発見されない場合には14~21日目での3回目の脳血管造影が必要である。さらに、この時点で発見されなければ、three-dimensional CT angiography (CTA), magnetic resonance angiography (MRA) などを用いた動脈瘤検索も有用であり<sup>16-20)</sup>、活用すべきである。

最後に、頻度は低いものの高位頸椎から頭蓋頸椎移行部にかけての硬膜動静脈奇形、脊髄動静脈奇形などを出血源として除外することも留意すべきである<sup>21-23)</sup>。

#### IV. 結 語

今回我々は、クモ膜下出血に対し初回の脳血管撮影にて出血源不明であった2例について報告した。2例ともその後、脳血管造影の再検を行い破裂動脈瘤の存在を確認し、再出血なく動脈瘤のクリッピングを行った。初回脳血管撮影で原因不明のクモ膜下

出血に対し繰り返し脳血管撮影を行うことは有用であり、今後、CTA, MRAなどの新しい神経放射線学的手法も積極的に取り入れてゆく必要があると考えられた。

#### 文 献

- 1) Eskesen V, Sorensen EB, Rosenorn J, et al. The prognosis in subarachnoid hemorrhage of unknown etiology. *J Neurosurg.* 1984; 61(6): 1029-1031.
- 2) Forster DM, Steiner L, Hakanson S, et al. The value of repeat pan-angiography in cases of unexplained subarachnoid hemorrhage. *J Neurosurg.* 1978; 48(5): 712-716.
- 3) 石井稜二, 黒木瑞雄, 田中竜一ほか. 出血源不明のクモ膜下出血: 臨床的検討. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 1983; 23: 262-266.
- 4) 京嶋和光, 岡田達也, 中州敏ほか. 出血源不明のクモ膜下出血の臨床的検討. *脳外* 1988; 16: 468-474.
- 5) 小笠原邦昭, 嘉山孝正, 桜井芳明ほか. X線CTで診断されたクモ膜下出血の出血源の検討. *脳神経* 1990; 42: 399-404.
- 6) Suzuki S, Kayama T, Sakurai Y, et al. Subarachnoid hemorrhage of unknown cause. *Neurosurgery.* 1987; 21(3): 310-313.
- 7) Gilbert JW, Lee C, Young B. Repeat cerebral pan-angiography in subarachnoid hemorrhage of unknown etiology. *Surg Neurol.* 1990; 33(1): 19-21.
- 8) 井上明, 佐藤進, 関口賢太郎ほか. 出血源不明のクモ膜下出血の検討 初回脳血管撮影で発見が困難な破裂脳動脈瘤の手術症例を中心に. *脳卒中* 1991; 13(4): 265-273
- 9) 小松洋治, 安田貢, 柴田智行ほか. 初回脳血管撮影で出血原因不明のクモ膜下出血症例の治療方針の検討. *脳神経外科* 1994; 22(1): 43-49.
- 10) Hayward RD. Subarachnoid haemorrhage of unknown aetiology. A clinical and radiological study of 51 cases. *J Neurol Neurosurg Psychiatry.* 1977; 40(9): 926-931.
- 11) Shuaib A, Lee MA, Johns RD, et al. Subarachnoid hemorrhage and normal angiography: should the angiogram be reviewed by a second neuroradiologist? *Can J Neurol Sci.*

- 1988 ; 15(4) : 413-416.
- 12) Endo S, Suzuki J. Anterior communicating artery aneurysm not visualized by angiography. Report of two successfully operated cases. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 1974 ; 14(pt1) : 69-73.
- 13) Sakai N, Yamada H, Ando T, et al. Prevention of rebleeding after operation for subarachnoid hemorrhage of unknown cause. *Neurosurgery*. 1985 ; 17(6) : 942-946.
- 14) McMahon J, Dorsch N. Subarachnoid haemorrhage of unknown aetiology: what next? *Crit. Rev. Neurosurg.* 1999 ; 9(3) : 147-155.
- 15) 橋本正明, 南出尚人, 得田和彦. 出血源不明のクモ膜下出血症例における急性期直達手術. *The Mt. Fuji Workshop on CVD* 1995 ; 13 : 27-32.
- 16) Lenhart M, Bretschneider T, Gmeinwieser J, et al. Cerebral CT angiography in the diagnosis of acute subarachnoid hemorrhage. *Acta Radiol*. 1997 ; 38(5) : 791-796.
- 17) Hsiang JN, Liang EY, Lam JM, et al. The role of computed tomographic angiography in the diagnosis of intracranial aneurysms and emergent aneurysm clipping. *Neurosurgery*. 1996 ; 38(3) : 481-487 discussion 487.
- 18) Vassilouthis J, Chrysikopoulos CH, Seferis CH. Magnetic resonance angiography demonstration of an angiographically occult anterior communicating artery aneurysm. *Br J Neurosurg*. 1997 ; 11(5) : 448-451.
- 19) 塩川芳昭, 斎藤勇. 出血源不明のクモ膜下出血への対応 血管撮影で描出されない破裂脳動脈瘤の急性期手術. *脳卒中の外科* 1996 ; 24 (3) : 171-176.
- 20) Keogh AJ, Sankhla SK. Magnetic resonance angiography for anterior midline aneurysms. *Br J Neurosurg*. 1996 ; 10(2) : 143-147.
- 21) 田口芳雄, 坂本辰夫, 平本準ほか. 頭蓋頸椎移行部硬膜動静脈瘻 その臨床像と治療法について. *聖マリアンナ医科大学雑誌* 2001 ; 29 (4) : 367-374
- 22) Kinouchi H, Mizoi K, Takahashi A, et al. Dural arteriovenous shunts at the cranio-cervical junction. *J Neurosurg*. 1998 ; 89(5) : 755-761.
- 23) 高橋毅, 濱田一也, 木下裕一郎ほか. 脊髄動静脈奇形破裂による頭蓋内クモ膜下出血の1例. *日本救急医学会雑誌* 2000 ; 11 (4) : 186-190.

# Two Cases of Ruptured Aneurysms Treated Successfully after Repeated Angiography

Toshiyuki Hayashi, Motoyuki Yamada, Jun Shinoda,  
Yasuhiko Ajimi

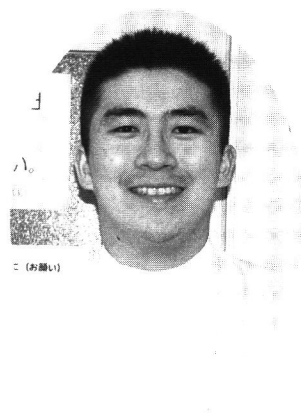
Department of Neurosurgery, Sizuoka Red Cross Hospital

**Abstract:** The authors reported two cases with ruptured aneurysms demonstrated by repeated angiography. Those patients were treated successfully by clipping without rerupture.

One of the 2 cases was a 51-year-old woman complaining of severe headache with mild consciousness disturbance. Computed tomography (CT) showed severe subarachnoid hemorrhage (SAH). First and second angiography failed to disclose bleeding point. She underwent third angiography 26 days after onset, when an aneurysm in left internal carotid artery -posterior communicating artery (IC-PC) was identified. The next day, she was operated on for the aneurysm by clipping, and discharged without any neurological deficit.

Another case was a 43-year-old woman who was admitted to our hospital with sudden loss of consciousness. CT revealed severe SAH. The initial angiography demonstrated a peripheral aneurysm of the right anterior cerebral artery. On the same day, clipping was done. She underwent angiography again 29 days after onset, which revealed another aneurysm in the anterior communicating artery (ACoA). Clipping was performed again 48 days after onset. Intraoperative findings indicated that the ACoA aneurysm was a ruptured one. She was transferred to other hospital in order to undergo further rehabilitation for tetraparesis.

**Key words :** subarachnoid hemorrhage, cerebral aneurysms, angiography



連絡先：林 俊行；静岡赤十字病院 脳神経外科

〒420-0853 静岡市追手町8-2 TEL (054)254-4311