

両側carotid reteに脳底動脈形成不全を合併した一例

Bilateral carotid rete mirabile associated with basilar artery agenesis

岐阜大学 脳神経外科 榎本由貴子

Yukiko Enomoto, MD.,PhD.

Department of Neurosurgery, Gifu Graduate School of Medicine, Gifu University

Key Words: carotid rete, segmental agenesis, basilar artery

はじめに

carotid rete mirabile (CRM) は内頸動脈のagenesis に伴い発達した外頸動脈系からのcollateral arterial networkであり、ヒトにおけるその脳血管撮影での頻度は0.01% と報告されている。今回、我々は両側CRMに脳底動脈形成不全を合併した一例を経験したので報告する。

症例 40代女性

既往歴 特記すべきものなし。

現病歴 頭部外傷を契機に施行された頭部MRIにて左眼窩内の異常血管と両側内頸動脈と脳底動脈の血管異常を指摘され (Fig.1)、精査目的で当院に紹介となった。身体所見上は左眼窩部の血管雑音を聴取し、左眼圧の軽度上昇 (右15mmHg、左24mmHg) を認めるのみで、特に神経学的異常所見は認めなかった。

3D-CTAでは、MRI/Aで指摘された両側頸部内頸動脈と脳底動脈のsegmental agenesis以外に、近位右鎖骨下動脈にも低形成を認めた。頭蓋底部には外頸動脈系からのcollateral networkと思われる異常血管網を認め、CRMの像を呈していた (Fig.2)。骨レベルCTでは頸動脈管は右側で欠損しており、左側は低形成であった (Fig.3)。

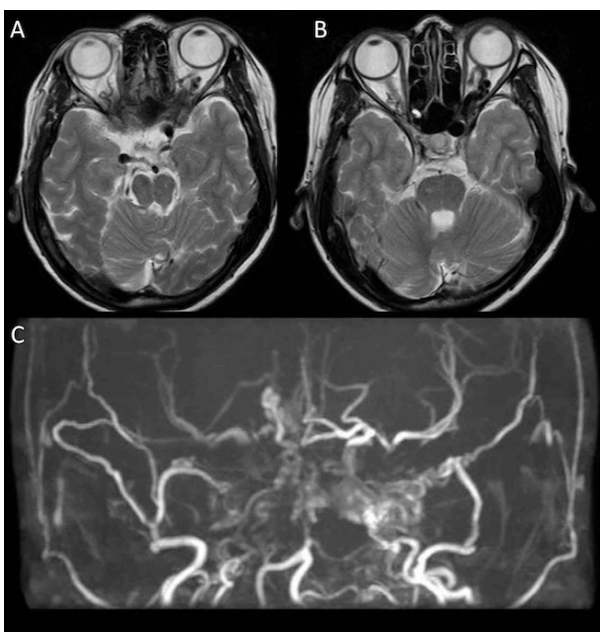


Fig.1 A,B: MRI T2WI, C: MRA

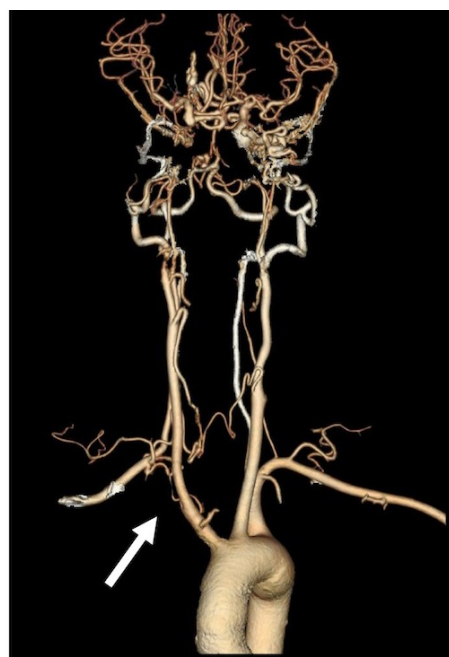


Fig.2 3D-CTA (arrow; absence of rt.subclavian artery)

Fig.3 Bone level CT scan in the skull base

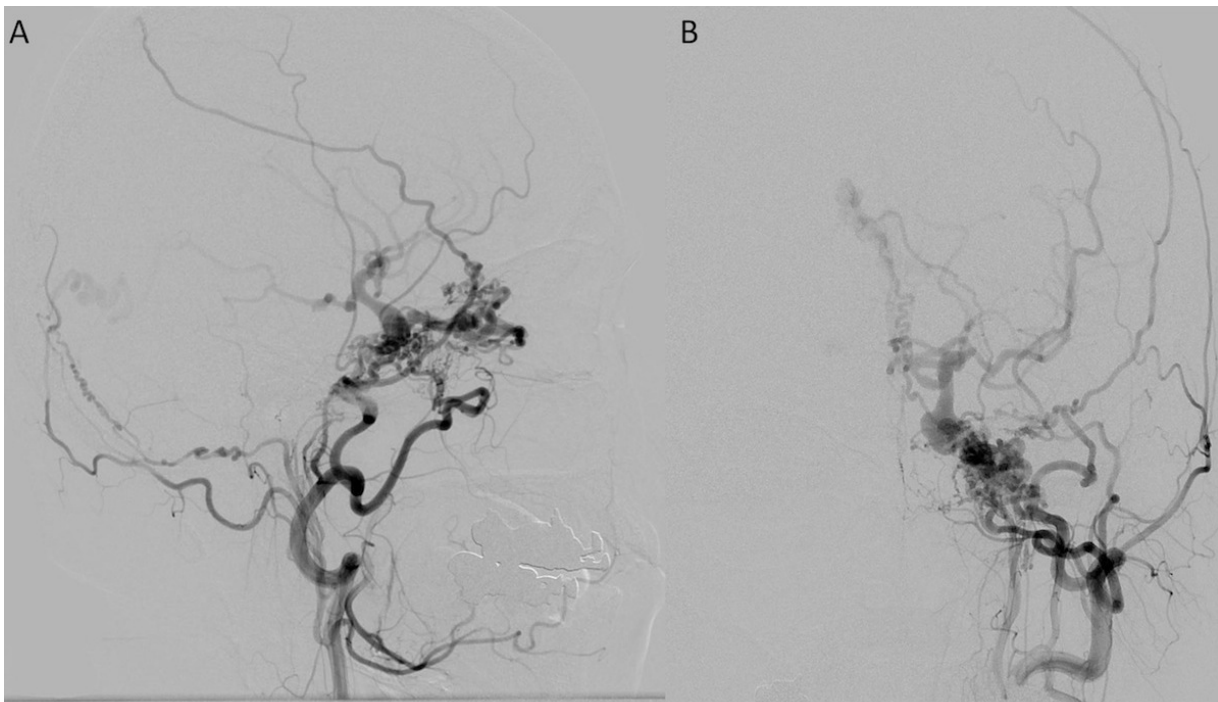
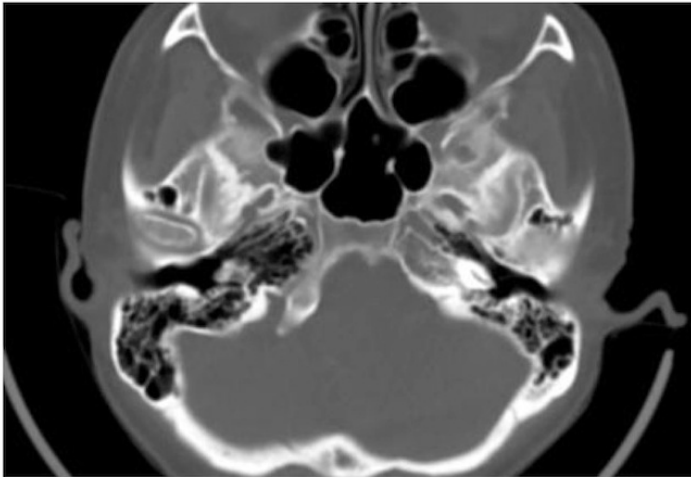


Fig.4 Lt.CAG A: LR view、B: AP view

脳血管撮影所見

1. 左内頸動脈撮影：ICAは頸部からC4（Lasjauniasの発生学表記における¹⁾ segment 1 - 5）まで欠損し、inferolateral trunk以遠は主にinternal maxillary arteryからsupplyされるCRMにより正常に描出されていた（Fig.4）。
2. 右内頸動脈撮影：ICAは頸部からC2（segment 1 - 6）まで欠損し、Pcom以遠は主にOAとMMAからのtransdural anastomosisにより硬膜枝を介して右PCAから逆行性に描出されていた（Fig.5）。
3. 右鎖骨下動脈撮影：右鎖骨下動脈は近位部のみ低形成を認め、右椎骨動脈分岐部以遠はinternal thoracic arteryやinferior thyroid arteryとの吻合を介してわずかな順行性血流を認めたが、主に対側VAからのsubclavian stealによりsupplyされていた(Fig.6A)。

4. 左椎骨動脈撮影：BAはAICAを分岐後に極端に狭小化し、わずかな順行性血流からは穿通枝が描出されるのみであった(Fig.6B)。

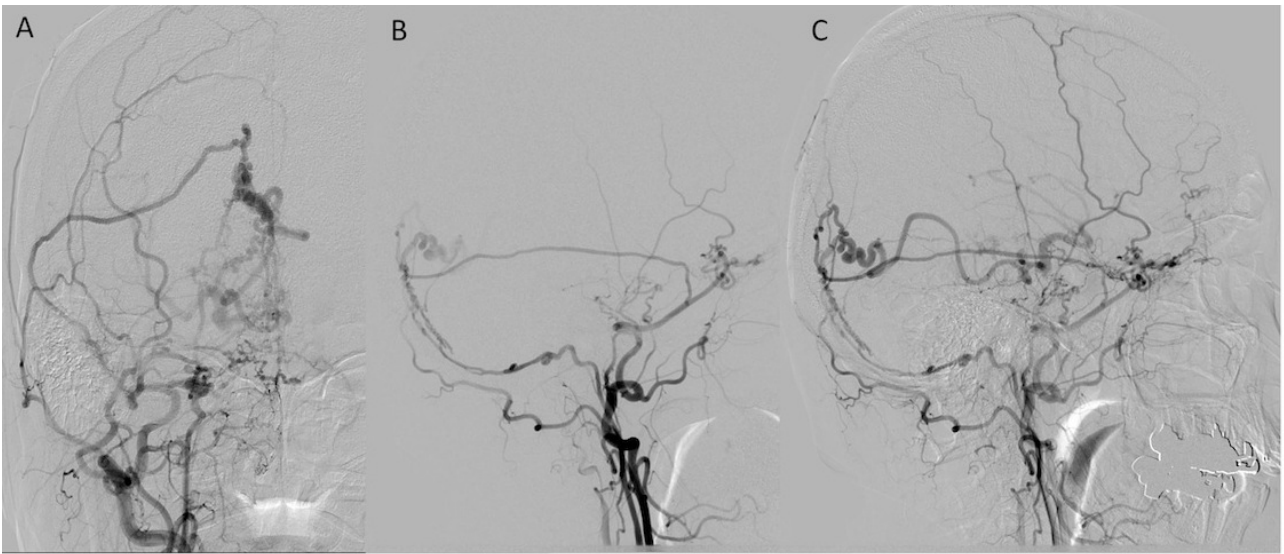


Fig.5 rt.CAG A: APview、 B・C: LR view



Fig.6 A: innominate artery angiogram、 B: lt. VAG

SPECTでは安静時CBFは保たれていたが、vascular reserveは右MCAとPCA領域で軽度の低下(10-20%)を認めた。無症状であるため保存的に経過観察を行っている。

考察

rete mirabileは頭蓋内脳血管のagenesisを代償するために発達した頭蓋内外側副血行路のrete-like collateral networkのことをさし、典型的には海綿静脈洞部内頸動脈にみられることが多い。

vertebrobasilar rete mirabileも報告されているが、その多くが両側CRMを合併しており、両者の発生機序に共通のtriggerやsusceptibilityがあると考えられる (Table) ²⁻¹²)。CRMの発生機序は、内頸動脈が最初から形成されていなければ原始動脈がcollateralとなる可能性が高いことから、一旦形成された内頸動脈がWillis動脈輪完成後に消退しておこると考えられている。

しかし本例は、左側では典型的なCRMを呈している一方、右側については右鎖骨下動脈の低形成や右頸動脈管無形成を伴っており、上記の機序のほか、右背側大動脈もしくは右第3・4大動脈弓形成不全の可能性も考えられた。また、OA/MMA-PCA transdural anastomosisは、血流不全を呈していたPCA領域をsupplyするためのrete mirabileの一部と考えられた。

文献

- 1) Lasjaunias P. Segmental identity and vulnerability in cerebral arteries. *Interventional Neuroradiol* 6:113-124, 2000.
- 2) Jones RR, Wetzel N. Bilateral carotid vertebrobasilar rete mirabile. Case report. *J Neurosurg* 33:581-586, 1970.
- 3) Koo AH, Newton TH. Pseudoxanthoma elasticum associated with carotid rete mirabile. *AJR Am J Roentgenol* 116:16-22, 1972
- 4) Itoyama Y, et al. Carotid and vertebral rete mirabile in man. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 33:181-184,1993.
- 5) Hyogo T, et al. Multiple segmental agenesis of the cerebral arteries: case report. *Neuroradiology* 38:433-436, 1996.
- 6) Mahadevan J, et al. Bilateral segmental regression of the carotid and vertebral arteries with rete compensation in a western patient. *Neuroradiology* 46:444-449, 2004.
- 7) Kim MS, et al. Bilateral segmental absence of the internal carotid artery with rete compensation associated with absence of basilar artery: case report. *Surg Neurol* 65:615-620, 2006.
- 8) Li G, et al. Carotid and vertebral rete mirabile in man presenting with intraparenchymal hemorrhage: a case report. *J Stroke Cerebro-vasc Dis* 15:228-231, 2006.
- 9) Sahin H, et al. Carotid and vertebrobasilar rete mirabile: a case report. *Surg Radiol Anat* 32:95-98;2010.
- 10) Castro S, et al. A new pattern of arterial rete compensation of segmental basilar agenesis associated with carotid retia mirabilia; a case report (2010: 1b). *Eur Radiol* 20:1024-1028,2010.
- 11) Lee SY, Cha SH. Bilateral carotid and vertebral rete mirabile presenting with a prominent anterior spinal artery mimicking a spinal dural AV fistula at MRI. *Korean J Radiol.* 12:740-44, 2011.
- 12) Nagahata M, et al. Bilateral carotid and vertebral rete mirabile presenting with subarachnoid hemorrhage caused by the rupture of spinal artery aneurysm. *Tohoku J Exp Med.* 230:205-209, 2013.