

[症例報告]

転職直後に頭頸部痛を伴わず動脈原性脳塞栓症で発症した特発性頭蓋外内頸動脈解離の1例

青山 雄一^{1,2*}, 大田 信介¹, 榊 三郎¹, 西澤 茂², 藤田 豊久³

¹ 白庭病院 脳神経外科

² 産業医科大学 医学部 脳神経外科

³ 済生会中和病院 脳神経外科

要 旨：51歳の男性，高血圧などの既往はなかった．2012年11月下旬に突然の意識障害にて救急搬送．外傷の機転や頭頸部痛はなかった．意識レベルは傾眠，全失語と上下肢に1/5の右片麻痺を認めた．頭部Magnetic Resonance Imagingでは拡散強調画像(DWI)で左中大脳動脈(MCA)領域の広範な高信号を認め，Magnetic Resonance Angiography(MRA)では左内頸動脈(IC)の頸部からの信号の途絶と前交通動脈を介した左血流信号の左MCAのM1部での途絶を認めた．心電図では不整脈などの異常はなく，頸部左ICの急性閉塞と塞栓性脳梗塞が疑われた．エダラボン，アルガトロバンを使用し，血圧管理も行いつつ治療を行った．発症3日後の頭頸部MRAにて左中大脳動脈M1部の再開通，左頭蓋外ICの閉塞と同部血管壁の出血性変化を認め，特発性頭蓋外内頸動脈解離が疑われた．約2週間後の血管造影では解離部の再開通と数珠状変化(pearl & string sign)を認めた．発症4か月後には神経症状はほぼ消失し，解離部も良好に再構築された．

キーワード：脳梗塞，塞栓性，特発性内頸動脈解離．

(2014年8月19日 受付，2014年11月11日 受理)

はじめに

特発性脳動脈解離は欧米では内頸動脈に多く発症するが，本邦では椎骨動脈部が大半で内頸動脈部はまれであり，またその病態や治療方針についても明確ではない[1-3]．今回，左内頸動脈の急性閉塞と動脈原性の塞栓性脳梗塞を来した特発性頸部頭蓋外内頸動脈解離に対して，保存的加療で良好な経過をたどった症例を経験したので，文献の考察を加えて報告する．

症 例：51歳，男性

主 訴：失語症，右片麻痺，意識障害

既往歴：高血圧症，糖尿病，高脂血症，不整脈などの特記すべき既往歴はなかった．

現病歴：2012年11月下旬，工作中，突然に傾眠状態，ほぼ全失語状態の失語症，重度の右片麻痺となり，救急搬

送された．外傷の機転はなく，発症時に頭頸部痛はなかった．なお発症約1月前に転職しており，前職ではまれであった長時間の時間外勤務，夜間勤務をこなしていた．

入院時所見：身長 166 cm，体重 68 kg，体温 36.4度，血圧 150/110 mmHg，脈拍 64/分(整)，SaO₂ 97%，意識レベルはGlasgow Coma Score(GCS) = 開眼機能(E) 3~4，言語機能(V) 評価不能，運動機能(M) 5~6，瞳孔不同はなく，ほぼ全失語で軽度の右中枢性顔面神経麻痺と右片麻痺(上下肢1/5)を認め，知覚の評価は困難であったが，痛み刺激では明らかな反応の左右差は認めなかった．National Institute of Health Stroke Scale(NIHSS) 14点と判断した．

心電図：脈拍 62/分(整)，心房細動など不整脈や軸変位などの異常を認めなかった．

*対応著者：青山 雄一 白庭病院 脳神経外科，〒630-0136 奈良県生駒市白庭台6丁目10-1, Tel: 0743-70-0022, Fax: 0743-70-0023, Email: buruman@muf.biglobe.ne.jp

血液検査：生化学検査では総蛋白 7.2 g/dl, アルブミン値 4.3 g/dl, 尿素窒素 12 mg/dl, クレアチニン値 0.7 mg/dl, 血糖 109 mg/dl, Low Density Lipoprotein (LDL) コレステロール 87 mg/dl, High Density Lipoprotein (HDL) コレステロール 45 mg/dl, 中性脂肪 67 mg/dl, HbA1c (国際標準値) 5.4%, C反応性タンパク 0.1 mg/dl. 血算では白血球 7200 / μ l (好中球 71.7%, 好酸球 1.9%, 好塩基球 0.4%, リンパ球 21.8%, 単球 74.2%), 赤血球 429 $\times 10^4$ / μ l, ヘモグロビン 13.2 g/dl, ヘマトクリット値 39.7%, 血小板 32.5 $\times 10^4$ / μ l, 赤血球像は正常であった. 凝固系はプロトロンビン時間国際標準時 (PT-INR) 0.95, 活性化トロンボプロトロンビン時間 (APTT) 25.9秒, フィブリン分解産物値 6.8 μ g/ml, Dダイマー 0.5 μ g未満/mlで異常はなかった. プロテインC抗原量 80%, プロテインC活性 98%, プロテインS抗原量 64%, プロテインS活性 23%, 抗カルジオリピン抗体 3U未満/mlと正常であった.

画像所見：頭部Computed Tomography (HCT) では明らかな出血やearly CT signは認めず. 頭部Magnetic Resonance Imaging (MRI) では拡散強調画像 (DWI) で左中大脳動脈 (MCA) 領域に広範な高信号を認めた. その他陳旧性のラクナ梗塞は少数で, Susceptibility Weighted Image (SWI) では微小出血を認めなかった. 頭部Magnetic Resonance Angiography (MRA) にて左内頸動脈 (IC) の血流信号は頸部から途絶し, 前交通動脈 (Acom) を介した左MCAの血流信号もM1部で途絶していた (Fig. 1).

入院後経過：当初は頸部内頸動脈のプラーク内出血による急性閉塞と動脈原性の塞栓性脳梗塞と判断した. DWIですでに広範な高信号が出現し家族の意向もあり, 血栓溶解療法は行わずアルガトロバンとエダラ

ボンの投与による加療を行った. 経過中, 心房細動などの不整脈はなく, 血圧も収縮期血圧 130 mmHg前後, 拡張期血圧 80 mmHg台を推移していた. 経胸壁心エコーでは明らかな塞栓源を認めなかった. 入院3日目のMRIでは梗塞部に拡大や出血性変化などなかったが (Fig. 2-A, B), 頭頸部MRAにて左MCAのM1部閉塞部の再開通と, 左内頸動脈岩様部の閉塞と血管壁の出血性変化を認めた (Fig. 2-C, D). これまでの検査所見や病変部位から, プラーク内出血ではなく頭蓋外内頸動脈解離を疑った. アルガトロバン, エダラボンの使用は継続し, より厳格に血圧管理を行った. 入院7日目のHCTでは梗塞部は亜急性化しつつあり, アルガトロバンとラジカットを終了し, クロピドグレル 75 mgの内服を開始した. 入院10日目の頸部MRI, MRAおよび15日目の血管造影では内頸動脈解離部の出血性変化が改善し, 閉塞部の再開通と動脈解離に典型的な pearl & string signを認め (Fig. 3-A, B, D), 特発性の頭蓋外内頸動脈解離と診断した. なお出血が血管壁内か, 破裂し壁外に及んでいるかははっきりしなかった. 左M1部の閉塞は良好に再開通していた (Fig. 3-C). 神経症状は改善し, 右片麻痺はこの時点で上下肢 5-/5程度で, 顔面神経麻痺は消失, 失語症も単語の発語, 理解, 復唱は良好となった. リハビリテーションを行いつつ, 頸部MRI, MRAにて経時的に評価を行ったが, 解離部の出血性変化は順調に改善し血管の再構築が進んでいった. 入院36日目に転院となり, 外来にて経過観察を継続した. 4ヶ月後には解離部は完全に再構築され (Fig. 4-E, F), 神経症状もほぼ消失した. 以後は再発を認めていない.

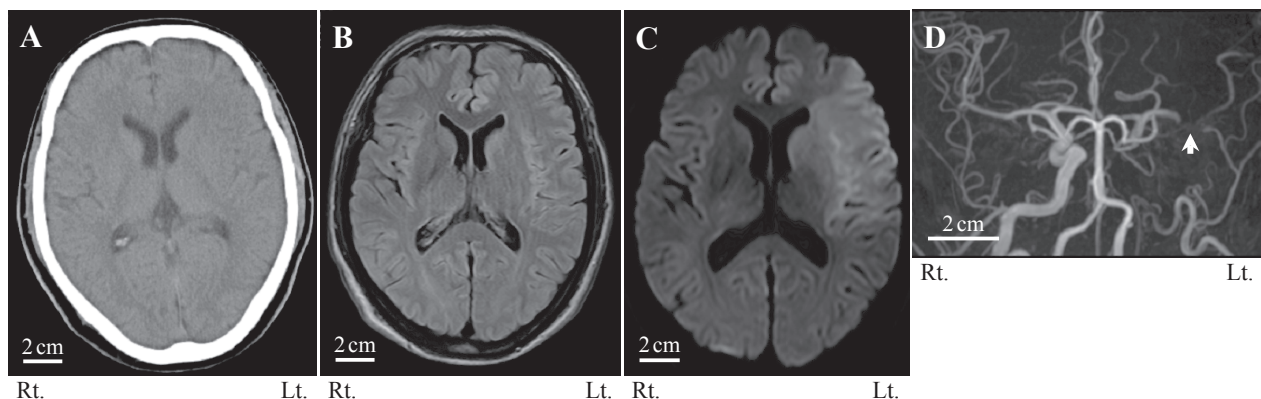


Fig. 1. First evaluation on admission. Head computed tomography (HCT) showed no significant fresh abnormality (A). Fluid-attenuated inversion recovery (FLAIR) image demonstrated no abnormal lesion (B), but Diffusion Weighted Image (DWI) revealed acute infarction in the left middle cerebral artery (MCA) territory (C), Magnetic Resonance-angiography (MRA) demonstrated left internal carotid artery and left M1 occlusion (arrow) (D).

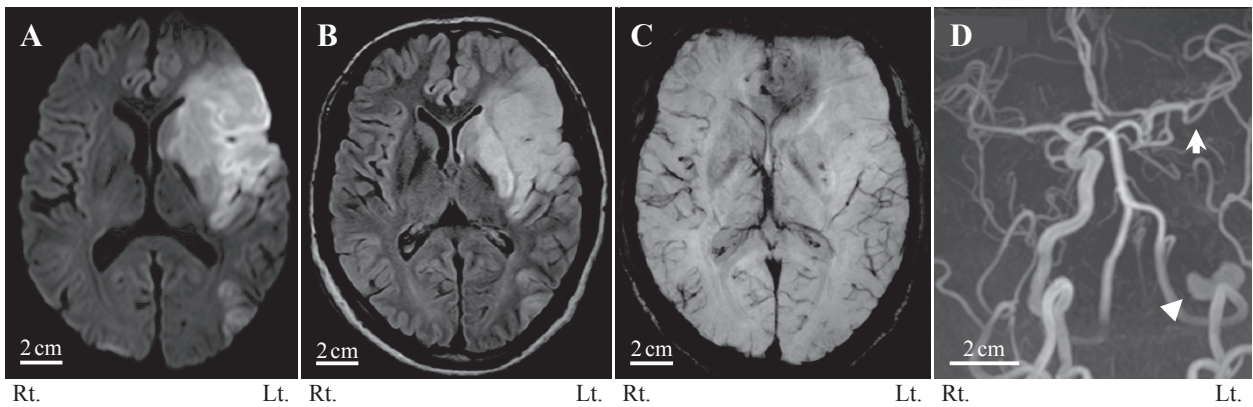


Fig. 2. Magnetic Resonance Image on three days after admission. Three days after admission, FLAIR image (A) and DWI (B) demonstrated no progression of infarction. Susceptibility Weighted Image (SWI) showed no bleeding (C). MRA revealed recanalization of left M1 occlusion (sharp arrow) and intracranial carotid artery dissected lesion of the petrous portion (arrow) (D).

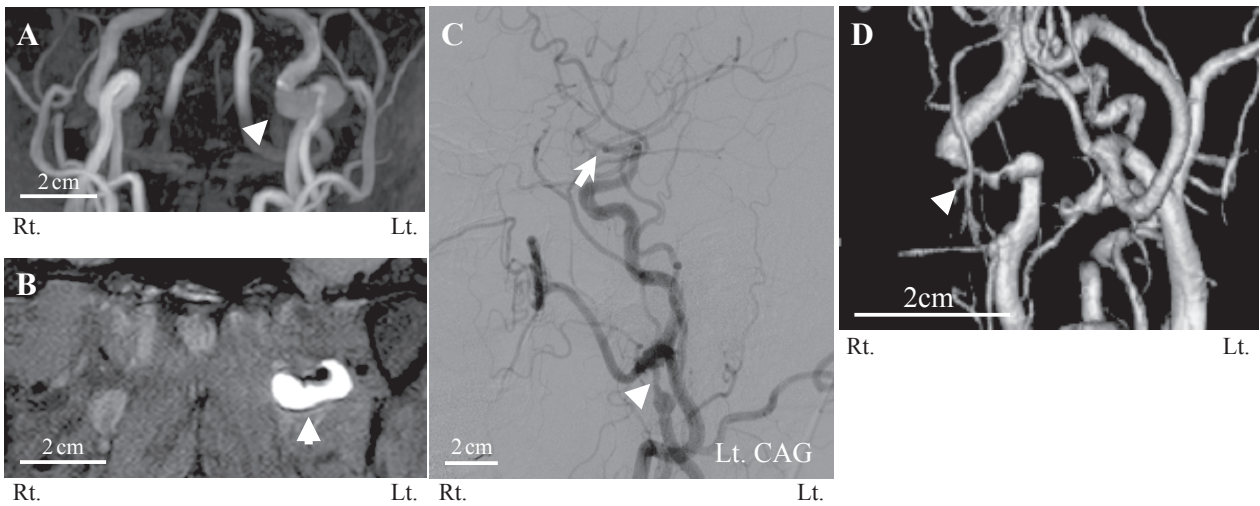


Fig. 3. Ten days after and fifteen days later angiography. Ten days later, MRA and FLAIR image showed no progression of dissected lesion and hematoma in internal carotid wall (arrow) (A, B). Fifteen days later, Carotid Arterial Angiography revealed full recanalization of left M1 occlusion (sharp arrow) and pearl and string sign in intracranial carotid artery of the petrous portion (arrow) (C, D). CAG: Coronary Angiogram.

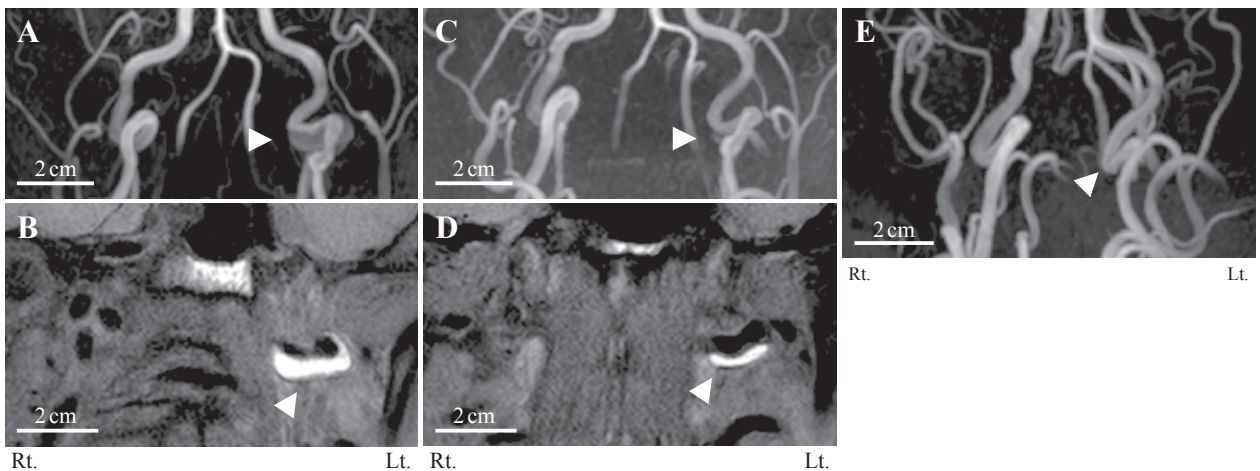


Fig. 4. Recovery of dissected lesion. The dissected lesion gradually improved from 4 weeks later (A, B) to 8 weeks later (C, D). After 4 months, MRA showed complete recovery of the carotid artery dissection (arrow) (E).

考 察

特発性頭頸部動脈解離は45歳未満の塞栓性脳梗塞の原因の2割を占め, 若年者や中年者における脳卒中の一因として重要な疾患である[4]. 欧米では血管解離の部位は内頸動脈で人口10万人あたり2.5~3.0人, 椎骨動脈で人口10万人あたり1~1.5人とされる[1, 5]. 本邦では, 発症年齢は平均52.2 ± 12.2歳と本症例と同様に比較的若年で, 病変部位は頭蓋内椎骨動脈系が63%, 頭蓋外椎骨動脈系が5%と, 原因は不明であるが解離部の大半は椎骨動脈系である. 椎骨動脈系以外では頭蓋内内頸動脈4%, 中大脳動脈4%, 前大脳動脈8%, 本症例のような頭蓋外内頸動脈は2%と稀である [2, 3].

発症時の症状は, 頸部痛, 頭痛が7割から8割程度にみられ, 頭痛のみを有意な神経症状とする場合もあると報告される一方で, 頭痛を認めるのは5割程度であるとする報告もあり[2, 3, 5, 6], 本症例のように頸部痛, 頭痛を伴わない場合も少なくないと思われる. ほかの神経症状としては虚血症状, Horner徴候, 舌下神経麻痺などの下位脳神経症状を認めるとされ, 虚血症状は狭窄による血行力学的要素を原因とするのは一部であり, 大半は解離によって生じた血栓による動脈原性塞栓にて発症するとされる[1, 2, 5, 7]. 本症例では, 入院時MRIにて塞栓性脳梗塞と診断し得たが, 比較的若年ではあるが心房細動など心原性を疑う原因がないことから, プラク内出血による急性の内頸動脈閉塞と動脈原性塞栓症と判断した. しかし実際は頭痛を伴わない頭蓋外内頸動脈解離による塞栓性の脳梗塞であり, 本症例のように比較的若年で脳梗塞の原因となるような既往がはっきりしない脳梗塞の症例では, 頭痛の訴えがなくとも血管解離の可能性も念頭に置き, 頭部MRIだけでなく頭部MRAを含めた精査を行うべきと思われた.

なお, 特発性頭頸部動脈解離の原因や危険因子は明確ではないが, 基礎疾患として半数に高血圧, その他には耐糖能異常, 脂質異常症があるとされ, 危険因子には先行感染, 片頭痛, 高ホモシステイン血症や遺伝子異常などが指摘されている[3, 8]. 本症例では高血圧の既往はなく, 先行感染や片頭痛の既往などの危険因子もなかった. しかし発症直前に転職し, それまで稀であった22時前後までの夜間勤務や時間外勤務が頻繁で, 作業自体もこれまでの職歴にはなかった大型の印刷機械の扱いであり, 強いストレスを感じていたとのことであった. 血圧は入院および休職中は収縮期血圧 120 mmHg台, 拡張期血圧 70 mmHg台を推移していたが, 復職後に160 mmHg前後/90 mmHg台と上昇

し降圧剤の使用を必要とした. なお搬送時も高血圧状態であった. ストレスによってカテコラミンなどの血管作動物質が分泌され血圧が上昇することは知られており, 発症前は急激な就労環境の変化が誘因となり血管作動物質が過剰に分泌され, 血圧が上昇した状態であったと推測される. 頭頸部血管解離の一部はReversible cerebral vasoconstriction syndrome (RCVS), Posterior Reversible Encephalopathy Syndrome (PRES)などと同様の病態である可能性が指摘され, その原因として急激な血圧上昇や血管作動物質の関与が推測されている[9, 10]. 上記のことから本症例では過剰なストレスによる血管作動物質の分泌と血圧上昇が, 内頸動脈解離を引き起こす一因となった可能性が考えられた.

治療については, 本症例では厳密な血圧管理と抗血小板剤を使用した. 虚血発症例に対しては厳密な血圧管理と抗凝固や抗血小板療法などの保存的加療が行われることが多く, 解離部の経時的な評価にはMRA, 超音波エコーが使用される. なお神経症状や病変部の増悪を認める場合には血管内治療によるステント留置が有効とされている[11-13]. 長期的な予後は特発性内頸動脈解離の場合, 再開通率は6から7割, modify ranking scaleも良好例が多いと報告されている[5, 11, 14]. 本症例でもMRAにて経時的に病変の評価を行うことができ, くも膜下出血などの発症や神経症状や病変部の増悪なく経過し, 血管解離部も良好に再構築され, 神経症状の大きな残存もなく復職し得た.

結 語

特発性頸部内頸動脈解離は比較的若年者の危険因子のない脳梗塞の原因として注意すべき疾患の一つである. またそれだけでなく, 日常診療でよくみかける頭痛や頸部痛の原因としても注意が必要である. 脳梗塞患者や頭痛患者の診断では鑑別のため, 頭部MRIや頭頸部のMRAを適宜施行していく必要があると思われた.

利 益 相 反

本論文には, 作成にあたり利益相反に相当する事項はありません.

引 用 文 献

1. DeBette S & Leys D (2009): Cervical-artery dissections predisposing factors, diagnosis, and outcome. *Lancet Neurol* 8: 668-678

2. 名古屋春満, 武田英孝, 傳法倫久, 加藤裕司, 出口一郎, 福岡卓也, 丸山 元, 堀内陽介, 棚橋紀夫 (2011): 特発性頸部内頸動脈解離 10 症例の臨床的検討. 脳卒中 33: 59-66
 3. Tsukahara T & Minematsu K (2010): Overview of spontaneous cervicocephalic arterial dissection in Japan. *Acta Neurochir (Suppl)* 107: 35-40
 4. Rahme RJ, Aoun SG, McClendon J Jr, El Ahmadih TY & Bendok BR (2013): Spontaneous cervical and cerebral arterial dissections: diagnosis and management. *Neuroimaging Clin N Am* 23: 661-671
 5. Lee VH, Brown RD Jr, Mandrekar JN & Mokri B (2006): Incidence and outcome of cervical artery dissection: a population-based study. *Neurology* 67: 1809-1812
 6. Maruyama H, Nagoya H, Kato Y, Deguchi I, Fukuoka T, Ohe Y, Horiuchi Y, Dembo T, Uchino A & Tanahashi N (2012): Spontaneous cervicocephalic arterial dissection with headache and neck pain as the only symptom. *J Headache Pain* 13: 247-253
 7. Lucas C, Moulin T, Deplanque D, Tatu L & Chavot D (1998): Stroke patterns of internal carotid artery dissection in 40 patients. *Stroke* 29: 2646-2648
 8. Debette S, Grond-Ginsbach C, Bodenant M *et al* (2011): Differential features of carotid and vertebral artery dissections: the CADISP study. *Neurology* 77: 1174-1181
 9. Soltanolkotabi M, Ansari SA, Shaibani A, Singer TB & Hurley MC (2011): Spontaneous post-partum cervical carotid artery dissection in a patient with reversible cerebral vasoconstriction syndrome. *Interv Neuroradiol* 17: 486-489
 10. McKinney JS, Messé SR, Pukenas BA, Satti SR, Weigele JB, Hurst RW, Levine JM, Kasner SE & Sansing LH (2010): Intracranial vertebrobasilar artery dissection associated with postpartum angiopathy. *Stroke Res Treat* 2010: pii 320627
 11. 小野純一, 樋口佳則, 松田信二, 他 (2011): 虚血発症の頭蓋内動脈解離の病態と治療方針. 脳卒中の外科 39: 272-277
 12. 竹内昌孝, 石黒朋子, 阿波根朝光, 小西善央, 松前光紀 (2010): 特発性内頸動脈解離の1例. *JNET* 4: 27-32
 13. Sturzenegger M (1995): Spontaneous internal carotid artery dissection: early diagnosis and management in 44 patients. *J Neurol* 242: 231-238
 14. Nedeltchev K, Bickel S, Arnold M, Sarikaya H, Georgiadis D, Sturzenegger M, Mattle HP & Baumgartner RW (2009): R2-recanalization of Spontaneous carotid artery dissection. *Stroke* 40: 499-504
-

A Case of Spontaneous Cervical Internal Carotid Artery Dissection with Embolic Stroke After a Job-Change

Yu-ichi AOYAMA^{1,2}, Shinsuke OHTA¹, Saburo SAKAKI¹, Shigeru NISHIZAWA² and Toyohisa FUJITA³

¹ *Department of Neurosurgery, and Shiraniwa Hospital, Shraniwadai, Ikoma-shi 630-0136, Japan*

² *Department of Neurosurgery, School of Medicine, University of Occupational and Environmental Health, Japan. Yahatanishi-ku, Kitakyushu-shi 807-8555, Japan*

³ *Department of Neurosurgery, Saiseikai Chuwa Hospital, Abe, Sakurai-shi, 633-0054, Japan*

Abstract : A 51 year old male was admitted to our hospital with sudden consciousness disturbance, global aphasia and right hemiparesis. Magnetic resonance imaging (MRI) revealed fresh infarctions in the territory of the left middle cerebral artery, and MR angiography (MRA) showed occlusion of the left carotid artery and the left middle cerebral artery. We started conservative therapy, including antiplatelet drug and blood pressure control. Three days later, cervical MRA revealed hematoma in the intracranial carotid wall of the petrous portion, leading to a diagnosis of spontaneous intracranial carotid artery dissection of the petrous portion. Two weeks after admission, MRA and angiography showed recanalization and pearl and string sign in the left petrous internal carotid artery. After that, the patient's neurological deficit improved, and the dissection also improved. Four months later, MR-angiography revealed an almost normalized condition.

Key words: cerebral infarction, embolic, carotid artery dissection, spontaneous.