

症例報告

構音障害と両下肢感覚障害で発症した橋両腹外側梗塞の1例

阿部宗一郎¹⁾ 岡崎 周平^{1)*} 殿村 修一²⁾
宮下光太郎¹⁾ 猪原 匡史¹⁾

要旨：進行性の構音障害と両下肢感覚障害で発症した稀な橋両腹外側梗塞の1例を報告する。症例は70代男性。検診で高血圧、脂質異常症、耐糖能異常を指摘されていた。来院10日前に歩行障害と構音障害を自覚、徐々に増悪し当科を受診した。来院時に両側顔面の温痛覚低下、構音障害、嚥下障害、下肢に強い四肢の温痛覚鈍麻、失調性歩行を認めた。頭部MRIにて橋の両腹外側に急性期梗塞巣があり、高解像度3次元MRIでは脳底動脈腹側に大きなプラークを認め、アテローム血栓性梗塞と診断した。本症例では橋動脈の短回旋枝が脳底動脈内のプラークにより両側同時に閉塞したと考えた。橋両腹外側梗塞の報告はなく、文献的考察を加えて報告する。

(臨床神経 2017;57:764-768)

Key words：脳梗塞，アテローム血栓性脳梗塞，橋動脈，短回旋枝，高解像度3次元MRI

はじめに

橋梗塞は脳梗塞の好発部位であり、脳梗塞全体の約7%を占める¹⁾²⁾。脳梗塞の中では穿通枝領域の梗塞として、外側線条体動脈領域と並び、比較的頻度が高い。橋の血管支配は非常に複雑であるが、橋下部では主に脳底動脈からの穿通枝である橋動脈に支配されており、内側から傍正中枝、短回旋枝、長回旋枝により栄養されている³⁾。橋梗塞では、傍正中枝の梗塞が多く、回旋枝領域単独の梗塞はやや稀であり、両側性回旋枝領域の梗塞はほとんど報告がない。我々は緩徐進行性の経過を辿った両側短回旋枝梗塞で、特徴的な梗塞巣を呈した症例を経験したため、解剖学的な考察を加え報告する。

症 例

患者：71歳，男性，右利き

主訴：うまく歩けない，呂律が回らない

既往歴：10年ほど前から検診にて高血圧・脂質異常症・耐糖能異常を指摘されていた。

内服薬：入院時内服薬なし。

家族歴：特記事項なし。

生活歴：喫煙なし，飲酒ビール350ml4本/日，アレルギーなし。

現病歴：これまで大病はなく，日常生活動作は自立し，医療機関への通院歴なし。2015年10月某日，車の運転中に突

然，左脚に違和感が生じ，クラッチ操作がうまくできなくなった。違和感を感じつつそのまま運転し帰宅したが，うまく歩行できず，床を見ながらでないと歩行が不安であった。翌日には呂律が回っていないことを友人に指摘されたが様子を見ていた。徐々に歩行困難が増悪し，一人では歩行困難になってきたため，発症7日目に近医を受診した。血液検査で糖尿病が見つかったため，糖尿病性ニューロパチーの疑いにて同院に入院となった。しかしその後も症状は改善せず，発症10日目に精査・加療目的に当院転院となった。

入院時現症：身長160cm，体重55kgで，血圧158/90mmHg，脈拍86回/分・整。その他，一般身体所見に異常を認めなかった。神経学的所見は意識清明であり，高次機能障害を認めなかった。脳神経系では，左眼の左下1/4盲を認めた。眼球運動障害なし。瞳孔は正円同大で対光反射迅速，両側顔面の温痛覚低下を認めた。めまい・耳鳴り・難聴は見られず，固形物優位の嚥下障害を認めた。舌偏倚・舌萎縮・線維索性収縮は認めなかった。筋トーンは正常で，四肢に筋萎縮・筋力低下は見られなかった。両下肢に強い四肢の触覚および温痛覚の鈍麻，両側下肢位置覚障害を認め，両下肢に軽度の振動覚低下を認めた。両膝蓋腱反射およびアキレス腱反射は低下し，病的反射は陰性であった。両側の指鼻指試験，膝踵試験は拙劣であった。加えて立位時，座位時に位置覚障害のみでは説明のつかない強い体幹運動失調を認めた。歩行では，Romberg 徴候陽性，Mann 徴候陽性，しゃがみ立ちは不可であり，失調性歩行を認めた。入院時National Institute of Health

*Corresponding author: 国立循環器病研究センター脳神経内科〔〒565-8565 大阪府吹田市藤白台5-7-1〕

¹⁾ 国立循環器病研究センター脳神経内科

²⁾ 市立奈良病院神経内科脳・神経センター

(Received August 21, 2017; Accepted October 3, 2017; Published online in J-STAGE on November 28, 2017)

doi: 10.5692/clinicalneuroi.cn-001090

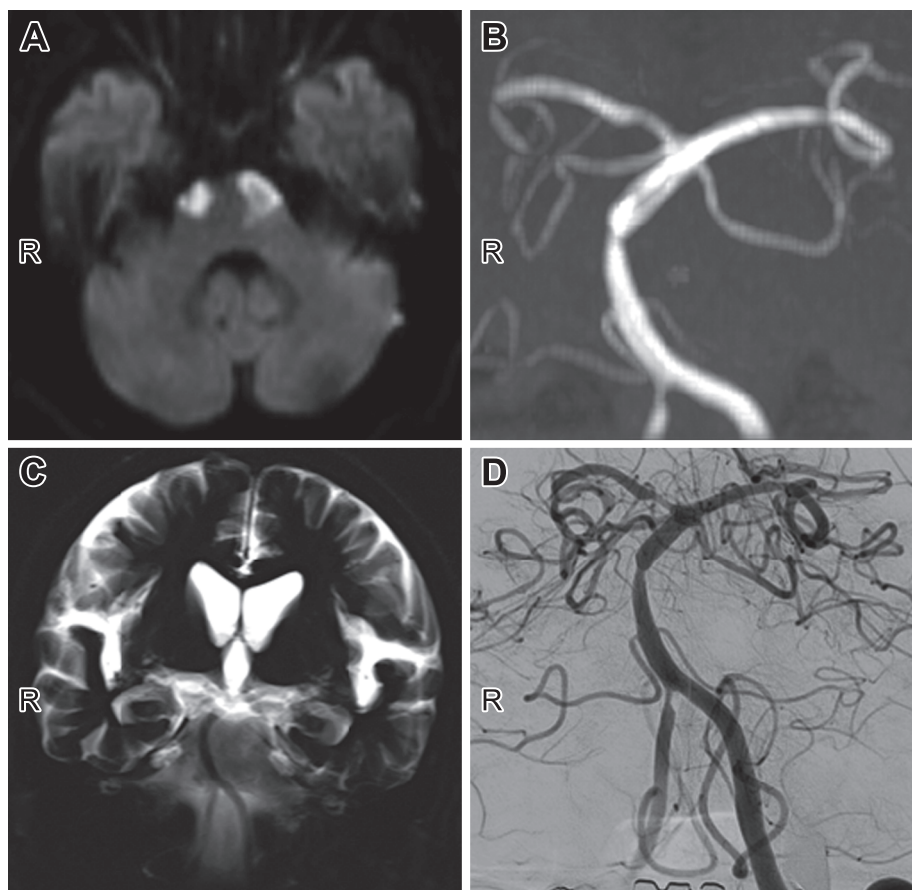


Fig. 1 Brain MRI and angiography on admission.

A) Diffusion weighted images show acute bilateral ventrolateral pontine infarction. B) MR angiography shows multiple stenosis in the distal right vertebral artery, basilar artery, and right posterior cerebral artery. C) Basi-parallel anatomical scanning image indicates the normal surface appearance of the basilar artery. D) Conventional angiography confirms atherosclerotic stenosis of the posterior circulation arteries.

Stroke Scale score (NIHSS) は4点であった。

検査所見：血液検査では末梢血、肝機能・腎機能は正常、随時血糖 238 mg/dl、HbA1c 10.6%と上昇を認めた。また、LDL コレステロールが 151 mg/dl と軽度上昇していた。12誘導心電図では洞調律で、心房細動や洞不全症候群は認めなかった。胸部X線、経胸壁心エコーでは明らかな異常所見を認めなかった。神経伝導検査では、正中神経、脛骨神経いずれも伝導速度が低下、F波潜時は延長しており、糖尿病性ニューロパチーを反映した結果と考えた。

画像所見：入院時の頭部MRIでは、拡散強調画像にて両側橋中部に高信号を認めた (Fig. 1A)。頭部MRAでは脳底動脈に壁不整を認めた (Fig. 1B)が、basi-parallel anatomical scanning (BPAS) 画像では血管外径に瘤形成は見られなかった (Fig. 1C)。頸動脈超音波検査では両側総頸動脈、内頸動脈に狭窄病変を認めず、両側椎骨動脈は順行性で明らかな遠位狭窄変化を示さなかった。入院後に行った血管造影では脳動脈解離を疑う所見を認めなかった (Fig. 1D)。これらの所見から動脈硬化性の多発脳動脈狭窄、およびそれに起因するアテローム血栓性

脳梗塞と考えた。

入院後経過：入院時には多発性狭窄から脳動脈解離を考慮していたが、頭部MRI/MRA所見、血管造影からアテローム血栓性機序による脳梗塞と考えた。このためアスピリン、クロピドグレルによる抗血小板2剤併用療法およびピタバスタチンによる加療を開始した。脳動脈主幹動脈の狭窄病変を評価目的に発症15日目に高解像度3次元頭部MRI画像 (Sampling perfection with application optimized contrasts using different flip angle evolutions; SPACE法) を撮像したところ、脳底動脈にプラーク形成を認め、矢状断でも脳底動脈腹側に明瞭なプラークが見られた (Fig. 2)。責任病巣として矛盾せず、脳底動脈穿通枝開口部の閉塞が脳梗塞の病因であると診断した。入院後に他の塞栓源を検索したが、ホルター心電図では心房細動や徐脈性不整脈を認めず、経食道心臓超音波検査でも心内血栓などの明らかな塞栓子は認められなかった。眼底検査では左眼底出血を認め、入院時より認めていた1/4盲の原因であると考えた。抗血小板2剤併用療法を継続しリハビリテーションを施行したところ、入院時著明に認めた両下肢の

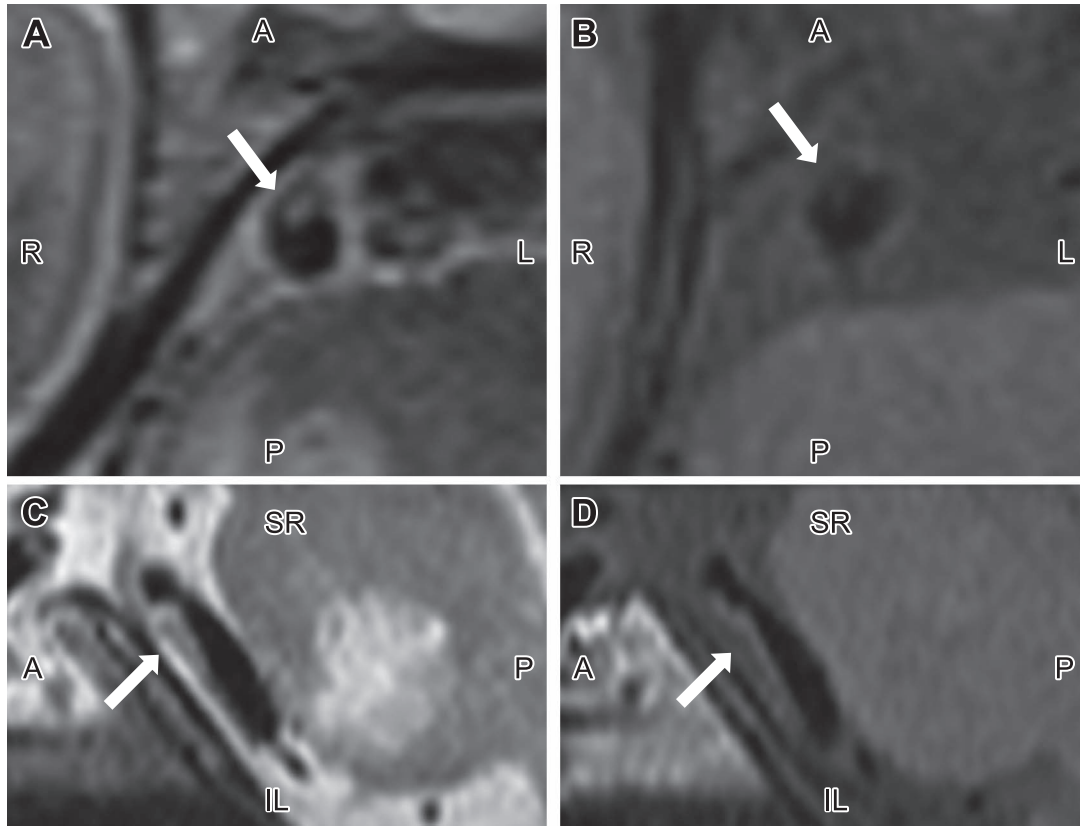


Fig. 2 High resolution tree-dimensional MRI images of the basilar artery.

A) MRI-Sampling perfection with application optimized contrasts using different flip angle evolutions (SPACE) T₁ weighted image: axial view. B) MRI-SPACE T₂ weighted image: axial view. C) MRI-SPACE T₁ weighted image: sagittal view. D) MRI-SPACE T₂ weighted image: sagittal view. A large atherosclerotic plaque is shown in the ventral side of the basilar artery (arrows). SPACE indicates Sampling perfection with application optimized contrasts using different flip angle evolutions.

深部感覚障害および体幹・四肢の失調は徐々に改善した。リハビリテーション継続目的に発症 28 日目に回復期リハビリ病院へ転院となった。退院時の NIHSS は 4, modified Rankin Scale は 2 点であった。発症 3 ヶ月後より外来にて抗血小板薬 1 剤に減量し、退院後約 1 年間再発なく経過している。

考 察

橋梗塞は脳梗塞全体の 7%¹⁾²⁾、後方循環系梗塞の 10~16% を占め^{4)~6)}、橋中部は主に脳底動脈の穿通枝である橋動脈が栄養し、橋動脈には傍正中枝・短回旋枝・長回旋枝があり、回旋枝は脳幹を回り込んで腹側から脳幹を灌流している²⁾。橋梗塞では両側性・多発性の病変を呈することは少なくないが、両側性の短回旋枝領域梗塞についてはこれまで報告がない。

Kumral らによれば、孤発性橋梗塞患者の梗塞巣について検討した結果では、150 例中、腹側内側梗塞が 87 例、腹側外側梗塞が 25 例、被蓋部が 18 例、両側性腹側梗塞が 14 例であった。しかしながら両側性の短回旋枝領域に局限した両側梗塞は 1 例もなかった⁵⁾。過去の脳底動脈の共通幹についての報告では、剖検例で 79.2%⁷⁾、血管造影でも共通幹を 50% に認

めたとある⁸⁾。本症例では来院 10 日前を初発症状として徐々に両側同時に増悪しており、両側短回旋枝の同時閉塞あるいは共通幹を介した一側の穿通枝閉塞が徐々に両側性の虚血を引き起こしたと考えた。

高解像度 3 次元 MRI 画像では、脳底動脈の腹側に局在した明瞭なプラーク形成を認め、これが穿通枝の開口部を閉塞したものと考えた。脳底動脈のプラークは一般には腹側や外側に分布することが多く報告されているが⁹⁾¹⁰⁾、穿通枝閉塞による梗塞では背側に分布することが多い¹¹⁾。本症例では脳底動脈腹側に位置するプラークが外側へ進展することによる穿通枝閉塞であったと考えられるため、頻度の多い傍正中枝は梗塞を免れ、短回旋枝にのみ梗塞をきたす特異な病巣を呈したと考えられた。

短回旋枝領域自体の梗塞が稀な要因の一つとして、症状が不明瞭であることが挙げられる。橋動脈領域では、傍正中枝の支配領域が錐体路の大部分、内側毛帯、被蓋部正中領域に分布し最も臨床症状を呈しやすい一方、短回旋枝領域は重要な神経核ないし神経経路への分布が比較的小さいため、この領域の病巣は無症候性になりやすい¹²⁾。本症例では数年来の糖尿病性ニューロパチーに加え、両側同時に短回旋枝領域

の病変をきたしたことにより、橋腹内側に位置する皮質脊髓路を侵さずに内側毛帯や中小脳脚、三叉神経脊髓路核およびその神経路を障害し、両側顔面の温痛覚低下、四肢・体幹の失調や四肢の触覚・温痛覚鈍麻が生じたものと考えた。特に四肢の触覚・温痛覚鈍麻や体幹失調は糖尿病性ニューロパチーを代償していた分、症状が強く出現し、来院に至ったと考えた。今回発見が遅れたのは、このように両側性の下肢低位の感覚障害が主症状であり、しかも糖尿病性ニューロパチーを合併していたことに起因する。また、錐体路症状を示さず、糖尿病性と思われるポリニューロパチーの存在・失調症状からは、局在診断としては脳血管障害より末梢神経障害を疑う経過であった。このことから頭部MRI撮像に到るまでに時間を要し、診断が困難であったと考えられる。

診断の決め手となった頭部MRIの高解像度3次元MRIは特にvessel wall imagingの分野において、近年非常に注目されている技術である¹³⁾¹⁴⁾。Tatsumiらは進行性の症状を呈した橋梗塞について、1.5 teslaのMRIでは指摘できなかったアテロームを剖検で報告しているが¹⁵⁾、本症例でも脳底動脈に明瞭なアテロームを認めており、高解像度3次元MRIを用いることにより従来指摘できなかった病変を描出できる可能性がある。

本例では脳底動脈穿通枝開口部閉塞によるアテローム硬化性脳梗塞と診断したが、二つの臨床疑点が残った。一つ目は、脳梗塞の病型分類であり、穿通枝開口部梗塞を画像上証明することは困難であり、偶発的にプラークが指摘された可能性は残る。二つ目に、両側性の梗塞をきたした原因として、共通幹の存在を推察したが、血管造影や頭部MRIでは共通幹を指摘できず、両側傍正中枝の共通幹はよく観察されるが、両側回旋枝の共通幹についての報告はない。

以上のような疑点が残るが、本症例のような両側短回旋枝の梗塞については報告が少ないため、症状や病因についてさらなる症例の蓄積を促したい。

結 語

橋の支配血管は複雑でvariationが多く、梗塞巣や症状が多彩である。本症例で見られた両側短回旋枝領域の梗塞は非常に稀であり、その背景には共通幹や血管同士の吻合が関与していると考えられた。

本報告の要旨は、第106回日本神経学会近畿地方会で発表し、会長推薦演題に選ばれた。

※本論文に関連し、開示すべきCOI状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

文 献

- 1) Silverstein A. Acute infarctions of the brain stem in the distribution of the basilar artery. *Confin Neurol* 1964;24:37-61.
- 2) Varsou O, Stringer MS, Fernandes CD, et al. Stroke recovery and lesion reduction following acute isolated bilateral ischaemic pontine infarction: a case report. *BMC Res Notes* 2014;7:1-5.
- 3) Hassler O. Arterial pattern of human brain stem: normal appearance and deformation in expanding supratentorial conditions. *Neurology* 1967;17:368-375.
- 4) Bassetti C, Bogousslavsky J, Barth A, et al. Isolated infarcts of the pons. *Neurology* 1996;46:165-175.
- 5) Kumral E, Bayülkem G, Evyapan D. Clinical spectrum of pontine infarction. Clinical-MRI correlations. *J Neurol* 2002; 249:1659-1670.
- 6) Searls DE, Pazdera L, Korbel E, et al. Symptoms and signs of posterior circulation ischemia in the new england medical center posterior circulation registry. *Arch Neurol* 2012;69: 346-351.
- 7) Djulejić V, Marinković S, Milić V, et al. Common features of the cerebral perforating arteries and their clinical significance. *Acta Neurochir (Wien)* 2015;157:743-754.
- 8) Lescher S, Samaan T, Berkefeld J. Evaluation of the pontine perforators of the basilar artery using digital subtraction angiography in high resolution and 3D rotation technique. *AJNR Am J Neuroradiol* 2014;35:1942-1947.
- 9) Huang B, Yang WQ, Liu XT, et al. Basilar artery atherosclerotic plaques distribution in symptomatic patients: a 3.0T high-resolution MRI study. *Eur J Radiol* 2013;82:e199-e203.
- 10) Chen Z, Liu AF, Chen H, et al. Evaluation of basilar artery atherosclerotic plaque distribution by 3D MR vessel wall imaging. *J Magn Reson Imaging* 2016;44:1592-1599.
- 11) Ryoo S, Lee MJ, Cha J, et al. Differential vascular pathophysiology types of intracranial atherosclerotic stroke: A high-resolution wall magnetic resonance imaging study. *Stroke* 2015; 46:2815-2821.
- 12) 洪江有恒, 西丸雄也. 橋の無症候性梗塞病巣. *脳卒中* 1998;20: 387-392.
- 13) Turan TN, Rumboldt Z, Brown TR. High-resolution MRI of basilar atherosclerosis: three-dimensional acquisition and FLAIR sequences. *Brain Behav* 2013;3:1-3.
- 14) Feng C, Xu Y, Bai X, et al. Basilar artery atherosclerosis and hypertensive small vessel disease in isolated pontine infarctions: A study based on high-resolution MRI. *Eur Neurol* 2013;70:16-21.
- 15) Tatsumi S, Yamamoto T. An autopsied case of an apparent pontine branch atheromatous disease. *Eur Neurol* 2010;63:184-185.

Abstract

**Progressive dysarthria and bilateral sensory disturbance
in a case of bilateral ventrolateral pontine infarction**

Soichiro Abe, M.D.¹⁾, Shuhei Okazaki, M.D., Ph.D.¹⁾, Shuichi Tonomura, M.D.²⁾,
Kotaro Miyashita, M.D., Ph.D.¹⁾ and Masafumi Ihara, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, National Cerebral and Cardiovascular Center, Osaka

²⁾Department of Neurology, Nara City Hospital, Nara

A rare case of bilateral ventrolateral pontine infarction in a 70-year-old man who developed progressive dysarthria and bilateral sensory disturbance is reported with literature review. He had been diagnosed with hypertension, dyslipidemia, and impaired glucose tolerance 10 years earlier. Ten days before admission, he was aware of the difficulty in walking and speaking, which gradually worsened. On admission he showed bilateral thermal hypoalgesia of face and lower extremities, dysarthria, dysphagia, and ataxic gait. High resolution three-dimensional MRI revealed bilateral ventrolateral pontine infarction with a large atherosclerotic plaque in the ventral side of the basilar artery, which led to a diagnosis of atherothrombotic brain infarction. The atherosclerotic plaque in the basilar artery was thought to be responsible for simultaneous occlusion of the bilateral short circumflex arteries of the pons.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2017;57:764-768)

Key words: cerebral infarction, atherothrombotic brain infarction, pontine artery, short circumflex artery, high resolution 3 dimensional MRI
