

1) 論文種別：症例報告

2) タイトル：環軸椎骨折に伴う両側椎骨動脈損傷に対して一期的両側椎骨動脈閉塞を行った 1 例

3) 著者名：橋口 充¹⁾，藤田敦史²⁾，塩見亮司³⁾，池田 充¹⁾，森川雅史¹⁾，甲村英二²⁾

4) 所属：1) 淀川キリスト教病院脳神経外科，2) 神戸大学大学院医学研究科脳神経外科学，3) 公立豊岡病院脳神経外科

5) 連絡先：製鉄記念広畑病院/脳神経外科

〒671-1122 姫路市広畑区夢前町 3 丁目 1 番地

TEL: 079-236-1038, E-mail: hashiguchi_art@yahoo.co.jp

6) キーワード：外傷性，椎骨動脈損傷，梗塞，一期的，両側椎骨動脈閉塞術

7) 宣言：本論文を，日本脳神経血管内治療学会 機関誌「JNET Journal of Neuroendovascular Therapy」に投稿するにあたり，筆頭著者，共著者によって，国内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないことを誓約致します．

環軸椎骨折に伴う両側椎骨動脈損傷に対して一期的両側椎骨動脈閉塞を行った 1 例

キーワード：外傷性，椎骨動脈損傷，梗塞，一期的，両側椎骨動脈閉塞術

和文要旨

Objective：末梢塞栓を生じた外傷性両側椎骨動脈損傷へ再発予防目的で一期的に両側椎骨動脈閉塞術を行い，経過良好であった症例を報告する．

Case presentation：転落で頭部受傷後に頸部痛，水平性眼振を認めた 78 歳男性．頸部 CT 上は環軸椎骨折，MRI 上は両側小脳半球梗塞を呈し，脳血管撮影で両側椎骨動脈損傷を認めた．椎骨動脈遮断試験後に一期的に両側椎骨動脈閉塞を行った．術後に新規神経症状と梗塞像の出現を認めず経過した．

Conclusion：外傷性椎骨動脈損傷では症候の有無，病変形態により治療法が選択されるべきであり，遮断試験を併用して両側病変の治療も可能であった．

緒言

外傷性椎骨動脈損傷（Vertebral artery injury：VAI）は入院を要する鈍的頭部外傷の 0.53 %程度に認める．さらに VAI の急性期では 24%が虚血性脳卒中を発症し，その 8%が死亡するため¹⁾，脳卒中予防は極めて重要である．VAI は症候性のものと，画像検査により偶

発的に発見される無症候性のものがある。症候性 VAI における虚血性脳卒中予防には抗血栓療法が有用との報告がある一方で、急性期に血管内治療で血管形成や塞栓術を行うことに関してはいまだ議論がある。これに対して無症候性 VAI の長期的自然史は解明されつつあるものの、治療介入を要するか否かについても見解が一定しない。今回われわれは環軸椎骨折に伴う症候性の両側 VAI を呈した患者に対して、急性期に末梢塞栓症予防を目的とした両側椎骨動脈閉塞を一期的に行い、良好な結果が得られた 1 例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症例提示

< 患者 > 78 才 男性

主訴：頭部外傷後頸部痛

既往歴：骨粗鬆症

現病歴：

自宅の階段で数段転落し後頭部を打撲した。受傷直後の意識消失はなく、その後も意識清明で四肢の痺れや麻痺等は認めなかったが、高度な頸部痛が持続したため当院救急外来に救急搬送された。

血液生化学的検査：異常なし

入院時現症：意識清明だが水平性眼振と高度頸部痛を認めた。その他の神経脱落症状は認めなかった。

神経放射線学的所見：頭部 computed tomography (CT) で頭蓋内に異常所見なし。環椎後弓右側，右外側塊，及び右横突孔を含む骨折

(Fig. 1 A, B)，軸椎左右の上関節面の骨折 (Fig. 1 C) を認めた。頭

頸部 magnetic resonance imaging (MRI) の拡散強調画像で両側小脳半球の後下小脳動脈 (posterior inferior cerebellar artery: PICA) 領域に多発性塞栓症を認めた (Fig. 1 D, E). 受傷の約 1 年前に撮影した MRI 及び MR angiography (MRA) 検査で異常所見はなかったが, 受傷時の MRA では両側 VA 及び脳底動脈の描出が不良であり (Fig. 1 F). 右椎骨動脈からの順行性血流と, 後交通動脈を介する逆行性血流により, MRA 上信号低下を招いていると考えられた. 緊急脳血管撮影の右椎骨動脈撮影で硬膜入口部付近から PICA 近位部に椎骨動脈損傷を示唆する高度狭窄を認めた (Fig. 2 A, C). 左椎骨動脈は硬膜入口部付近で完全に閉塞 (Fig. 2 B) していた. 左内頸動脈撮影では後交通動脈を介して脳底動脈遠位部が描出された (Fig. 2 D).

治療: 入院当日の MRI 撮影後から持続ヘパリン投与を開始し, 入院当日の APTT (activated partial thromboplastin time) 22.3 秒 (基準値 25-45 秒) であったものを, 1.5-2.0 倍を目標にして 38.2 秒まで延長させて管理した. 入院翌日 (Day 1) にハローベストによる頸椎外固定を行った. MRI 上の梗塞所見は受傷直後に生じた可能性もあったが, 血栓療法の評価をするための MRI 検査は頻回に行えなかった. 臨床的にも嘔気は改善しており, その後は抗凝固療法によって, 症候性塞栓症の発生が抑えられているものと考えた. 臨床的には軽症であったが, 整形外科 (主科) において観血的治療の適応と判断された際に, 病変付近の手技によって左側椎骨動脈の閉塞病変が再開通することも考えられた. そして, これを誘因として末梢塞栓症を生じる可能性と, 右側椎骨動脈の狭窄病変増悪により虚血性合併症を生じる可能性があった. これらのデータを基に主科の外科的治療

介入時に伴う合併症頻度を呈示して話し合いをした結果，コイル塞栓術を施行する方針とした．Day 2 に左椎骨動脈の閉塞病変に対してコイル塞栓術を施行し，同時に右椎骨動脈遮断試験を行い，その結果により右椎骨動脈の狭窄病変に対するコイル塞栓術の適応を検討する方針とした．

血管内治療：局所麻酔下に右大腿動脈に6 French (Fr) ロングシース，左大腿動脈に5Frロングシースを留置，ヘパリン3000単位を静注し，以後1000単位/時を持続静注した．6Fr Roadmaster (Goodman, Aichi, Japan)を左椎骨動脈に留置，Excelsior 1018 straight (Stryler, Kalamazoo, MI, USA) をAsahi Chikai 14 (朝日インテック，愛知) を用いて左椎骨動脈閉塞部位直近に留置，Orbit Galaxy (Codman Neuroendovascular, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA) 4本，Guglielmi detachable coil (GDC) 18 (Stryler, Kalamazoo, MI, USA) 3本を用いて椎骨動脈を閉塞した．ガイドィングカテーテルを右椎骨動脈に変更し，Septer XC 4mm x 11mm (MicroVention TERUMO, Tustin, CA, USA) をAsahi Chikai 14 (朝日インテック，愛知) を用いて椎骨動脈損傷部の近位に誘導，右椎骨動脈遮断試験を行った．10分間の遮断中に新たな神経症状の出現はなく，同時に行った左内頸動脈撮影で逆行性に脳底動脈，両側椎骨動脈から両側PICAまでが良好に描出されることが確認され (Fig. 3A, B)，右椎骨動脈のコイル塞栓が可能と判断した．左側と同様にExcelsior 1018 straight (Stryler, Kalamazoo, MI, USA) をAsahi Chikai 14 (朝日インテック，愛知) を用いて右椎骨動脈損傷部直近に留置，Orbit Galaxy (Codman Neuroendovascular, Johnson & Johnson, Miami, FL, USA) 4本，

Guglielmi detachable coil (GDC) 18 (Stryler, Kalamazoo, MI, USA) 3本を用いて椎骨動脈を閉塞した。両側椎骨動脈閉塞後に行った左内頸動脈撮影では後交通動脈を介して逆行性に脳底動脈から両側PICA末梢までが描出された (Fig. 3 C, D)。

術後経過：術後 24 時間は 15000 単位/日の持続ヘパリン投与を行い、ヘパリン中止後は抗血栓薬内服を行わなかった。塞栓術後に新規神経症状を認めず、眼振は経時的に改善し退院時には消失した。術後 6 日目に行った 3D-CT angiography では脳底動脈-椎骨動脈を介した両側 PICA 末梢までの描出は良好であった。術後 31 日でハローベスト装着のまま回復期病院へ転院となった。その 1 ヶ月後に回復期病院を退院し、治療後 4 ヶ月で骨癒合良好のためハローベストを除去した。その際に神経脱落症状を認めなかった。治療後約 1 年経過後の整形外科診察でも骨癒合良好と判断されて整形外科のフォローは終了した。

考察

末梢塞栓により虚血性合併症を呈した症候性両側 VAI に対して、積極的な両側椎骨動脈コイル塞栓術は有用である可能性が、本症例により示唆された。しかし、外科的治療介入に関しては議論を要する部分が多く、今回の治療が全ての症例に適応できるわけではない。以下、VAI に対する外科的治療の適応について、現時点でのスタンダードを検討し考察する。

VAI に引き続く虚血性脳卒中の発症は予後不良因子であるため¹⁾、虚血性合併症を呈する症候性 VAI は治療介入の対象となる。一方で

画像所見のみの無症候性 VAI であれば、その判断に迷うことも多い。VAI 受傷後の虚血性合併症は、血管内皮損傷による緩徐な血栓形成によって、惹起されると考えられており²⁾、抗血栓療法が有効とされる¹⁾。Inamasu らは米国のガイドラインや、その他の報告を引用した文献レビューを行い、無症候性 VAI に対して、抗血栓療法が有効である可能性を報告した³⁾。症候性 VAI だけでなく、無症候性 VAI においても、まずは内科的治療を行うことが標準的である。

内科的治療の適応に比べると、母血管コイル塞栓術を含めた外科的治療の適応に関しては、未だ議論の余地が残されている。損傷血管において形成された塞栓子の飛散を防ぐため、椎骨動脈の損傷部位直近で、椎骨動脈コイル塞栓術を行うことは理論的に有効と思われる。抗血栓療法禁忌の症例や、抗血栓療法でコントロールできない進行性の症候性 VAI に対する外科的治療介入については、異を唱えるものは少ない。一方で、無症候性 VAI や、症状増悪のない症候性 VAI に対する外科的治療介入については、いまだ議論の余地がある。VAI の自然経過について文献的調査を行うと、Biffl らが Denver grading scale を用いて、VAI を含めた脳血管損傷症例の経過を報告している⁴⁾。Denver grading scale とは脳血管撮影法によって損傷血管を形態学的に分類したもので、損傷血管の狭窄率 25% 以下を Grade I、狭窄率 25% 以上を Grade II、偽動脈瘤を Grade III、血管閉塞を Grade IV、血管離断や動静脈瘻を Grade V と分類している⁵⁾。彼らの報告によると、Grade I から Grade II 以上への変化は 8.6% (8/93 血管)、Grade II から Grade III 以上への変化は 45.9% (17/37 血管)、Grade III から Grade IV への変化が 3.3% (1/30 血管) であった。また、VAI 症例に

おける脳卒中発症率も検討しており，脳卒中発症率は Grade I で 6% と低く，Grade II で 38%，Grade III で 27%，Grade IV で 28% と高値であった⁴⁾．彼らの研究は抗血栓療法を施行していない症例も含んでいる．さらに，予後不良のためフォローアップできなかった症例は除外されている．しかし，この報告は損傷脳血管が，経時的に形態増悪する場合があると報告した上で，その割合が Grade ごとに異なる可能性について示した．さらには脳血管損傷後の脳卒中発症率も Grade ごとに差がある事も示した．以上から，無症候性 VAI，または非進行性の症候性 VAI に対する外科的治療の適応は，損傷血管の Grade 評価を踏まえて判断されるべきである．

本症例では左側 VAI が Grade IV（血管閉塞）を呈したことから，頸椎骨折に対する外固定後に椎骨動脈コイル塞栓を施行した．頸椎亜脱臼などで椎骨動脈が物理的に閉塞した症例では，整復後の再開通によって末梢塞栓を生じる可能性がある．これを予防する目的で，急性期に母血管コイル塞栓術を行った報告もある⁶⁾．しかし整復を必要としない症例などで，慢性期再開通に備えた予防的母血管コイル塞栓術の有効性は証明されていない．血管閉塞を呈する VAI の自然歴に関するデータは少ないが，Scott らは VAI (Grade 4)，43 例を平均 67 日間（7 - 240 日）観察している．この研究では 28 例（65%）が再開通せず，15 例（35%）が再開通した．stroke は急性期発症の 3 例（7%）のみであり，抗血栓療法開始前の発症であった可能性を考察した．亜急性期以降では再開通症例を含めて stroke を認めなかったことから，亜急性期以降の再開通は stroke のリスクではない可能性がある．なお，彼らはシリーズ初期に 11 例（26%）に対してコイ

ル塞栓術を行った。しかし、2008 年以降には施行しておらず、予防的母血管コイル塞栓術の有効性は不明瞭であった⁷⁾。その一方で、閉塞病変に対して積極的に外科的治療を行った報告もある。

Hagihara らは Grade IV に分類される VAI の 8 血管のうち、6 血管にコイル塞栓術を行い、全例で虚血性合併症を認めなかったと報告した⁸⁾。このように、母血管コイル塞栓術の有用性は示唆されるものの、今後のエビデンス蓄積により閉塞病変も抗血栓療法のみで経過観察することが推奨される可能性がある。

VAI に対する初期治療は、症候性の有無を問わず、抗血栓療法を中心とした内科的治療を施行することが一般的である。そして症状が増悪した症例、または抗血栓剤禁忌の症例に対して、外科的治療を追加、選択することが適切と思われる。無症候性 VAI、もしくは非進行の症候性 VAI では、損傷血管の形態分類もふまえて外科的治療の追加を検討すべきである。本症例では整形外科による処置に備え、抗血栓療法を避ける目的で外科的治療介入を行い、術後の抗血小板療法を行わなかった。近位部閉塞術を行った場合、通常は stump 部に生じた急性期血栓形成による穿通枝閉塞などを予防する目的で、術後抗血小板療法が行われる。今回、術後の脳血管造影を確認すると、脳底動脈では逆行性血流が両側 PICA へ良好に flow out していた事に加え、閉塞部位から末梢の椎骨動脈本幹部の stump が非常に短距離であったことと、治療後に整形外科による観血的治療が必要になる可能性があったため、術後抗血小板療法を開始せずに経過観察を行った。しかしながら、術後経過中に抗血小板剤が使用可能となった時点で、迅速に投与開始すべきであったのかもしれない。

い.

結語

環軸椎骨折に伴う症候性両側 VAI に対して一期的両側椎骨動脈コイル塞栓術を施行し、虚血性脳卒中の再発予防に有効であった症例を報告した。VAI に関する文献的考察により、VAI では症候の有無、病変形態（狭窄ないしは閉塞）により治療法が選択されるべきである。

利益相反開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

文献

- 1) Biffl WL, Moore EE, Elliott JP, et al: The devastating potential of blunt vertebral arterial injuries. Ann Surg 2000; 231: 672-681.
- 2) Marks RL, Freed MM: Nonpenetrating injuries of the neck and cerebrovascular accident. Arch Neurol 1973; 28: 412-414.
- 3) Inamasu J, Guiot BH: Vertebral artery injury after blunt cervical trauma: an update. Surg Neurol 2006; 65: 238-245.
- 4) Biffl WL, Ray Jr, CE, Moore EE, et al: Treatment-related outcomes from blunt cerebrovascular injuries: importance of routine follow-up

arteriography. *Ann Surg* 2002; 235(5): 699-707.

5) Biffl WL, Moore EE, Offner PJ, et al: Blunt carotid arterial injuries: implications of a new grading scale. *J Trauma Acute Care Surg* 1999; 47(5): 845-853

6) Hara Y, Yamashita H, Tomioka M: Vertebral Artery Injury associated with Cervical Spine Trauma: Indication for Endovascular Intervention. *Jpn J Neurosurg (Tokyo)* 2009; 18:386–390.

7) Scott WW, Sharp S, Figueroa SA, et al: Clinical and radiological outcomes following traumatic Grade 3 and 4 vertebral artery injuries: a 10-year retrospective analysis from a Level I trauma center. The Parkland Carotid and Vertebral Artery Injury Survey. *J Neurosurg* 2015; 122: 1202-1207.

8) Hagihara Y, Ueno M, Yamamoto A, et al: Blunt cerebrovascular injury and its therapeutic strategy: importance and efficiency of endovascular therapy. *JJAAM* 2009; 20: 212-20.

Figure 1

Axial cervical computed tomography scans (A–C) revealed C1 right posterior arch fracture and C2 vertebral body fracture.

Diffusion-weighted MRI images (D, E) showed multiple high signal

intensity lesions in the territory of the bilateral posterior inferior cerebellar artery. MR angiography (F) revealed no signal of the lower basilar artery (BA).

Figure 2

Preoperative right vertebral artery angiography (VAG) (A) and left VAG (B) revealed right vertebral artery (VA) injury and left VA occlusion. Three-dimensional digital subtraction angiography of right VAG (C) showed a stenosis and wall irregularity of the right VA proximal to the origin of the posterior inferior cerebellar artery. Left common carotid artery angiography (D) showed opacification of the upper basilar artery from the anterior circulation via the posterior communicating artery.

Figure 3

Left common carotid angiography (CCAG) during balloon test occlusion of the left VA showed opacification of the right posterior inferior cerebellar artery (A). Note, the balloon was placed in the right VA and detachable coils were placed in the left VA (B). Left CCAG after bilateral VA occlusion (C, D) showed good contrast filling at the vertebra-basilar artery and flow out to the bilateral posterior inferior cerebellar artery.

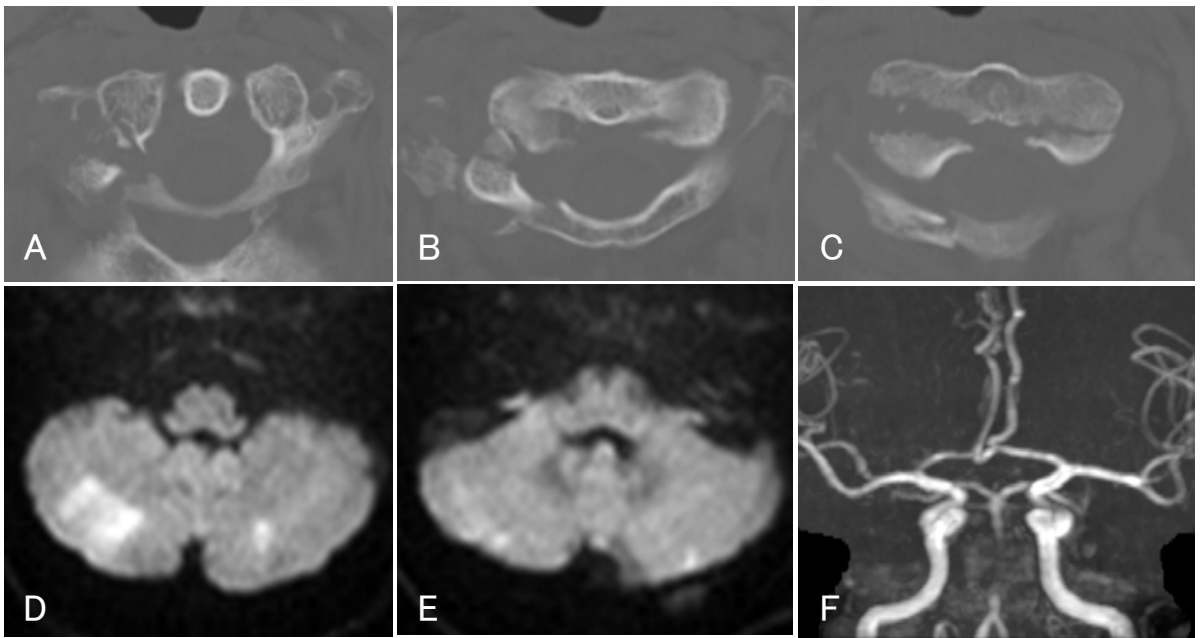


Figure 1

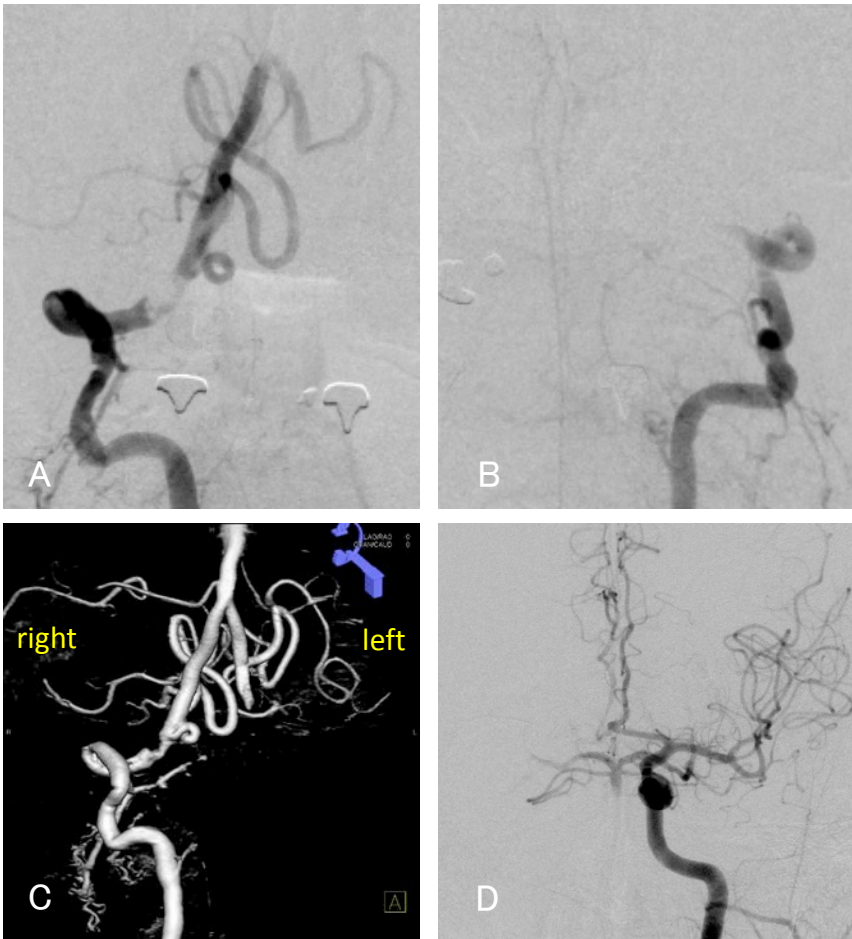


Figure 2

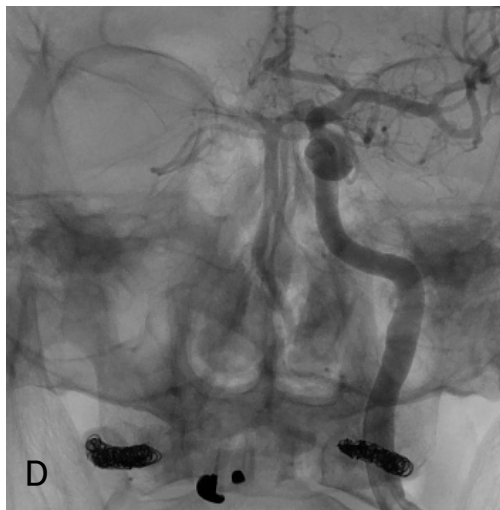
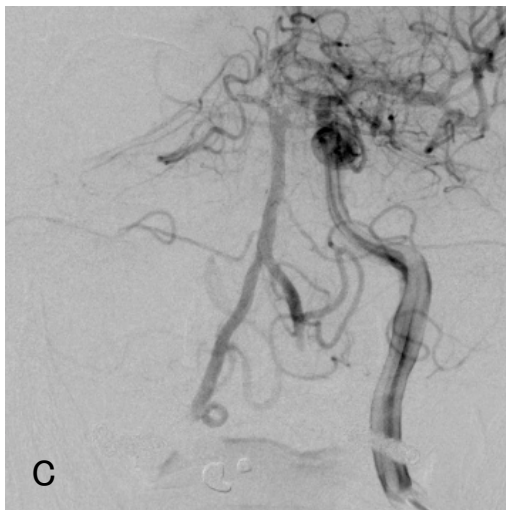
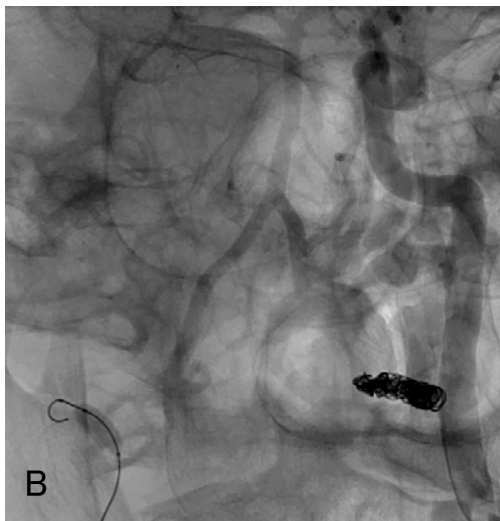
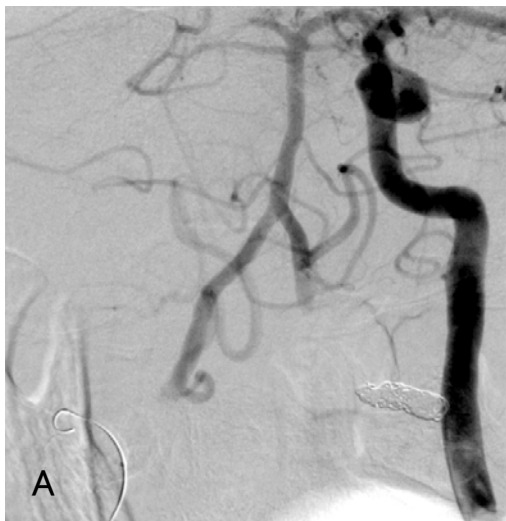


Figure 3