

【論文種別】

症例報告

【論文タイトル】

診断脳血管撮影時にくも膜下出血を生じた虚血発症内頸動脈 C2 部  
解離の 1 例

【著者】

前田拓真<sup>1)</sup> 佐藤徹<sup>1)</sup> 濱野栄佳<sup>1)</sup> 橋村直樹<sup>1)</sup> 高下純平<sup>2)</sup>  
田中寛大<sup>3)</sup> 吉本武史<sup>4)</sup> 井上学<sup>2,3)</sup> 古賀政利<sup>2)</sup> 西村真樹<sup>1)</sup>  
高橋淳<sup>1)</sup>

【所属施設】

- 1) 国立循環器病研究センター 脳神経外科
- 2) 国立循環器病研究センター 脳血管内科
- 3) 国立循環器病研究センター 脳卒中集中治療科
- 4) 国立循環器病研究センター 脳神経内科

【連絡先】

〒564-8565 大阪府吹田市岸部新町 6 番 1 号

国立循環器病研究センター 脳神経外科

前田 拓真

Phone: 06-6170-1070 Fax: 06-6833-9865

E-mail: [miyuki.yuming@gmail.com](mailto:miyuki.yuming@gmail.com)

【キーワード】

Internal carotid artery dissection, cerebral infarction, subarachnoid hemorrhage, endovascular treatment, parent artery occlusion, internal trapping

【宣言】

本論文を、日本脳神経血管内治療学会 機関紙 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。

## 【和文要旨】

目的：脳血管撮影時にくも膜下出血を生じた虚血発症内頸動脈 C2 部解離の 1 例を経験したので報告する。

症例： 60 歳，女性．来院 1 週間前より右半身の異常感覚を自覚．突然の右片麻痺が出現し当院へ救急搬送された．MRI で左中大脳動脈領域の多発小梗塞を認め，MRA で左内頸動脈は起始部より描出されなかった．脳血管撮影及び血行再建術を施行することとし，左内頸動脈造影を行うと，C2 より造影剤の血管外漏出を認めた．止血のため左 C1 及び C2 の internal trapping を施行した．患者は右片麻痺と運動性失語が残存し，mRS 4 で第 28 病日に転院となった．

結論：先行する頭痛や神経症状を伴う tandem lesion では，解離の可能性を考慮し，造影剤の慎重な注入が必要と思われた．

## 【緒言】

非外傷性頭蓋内動脈解離において，罹患血管が閉塞している場合術前に解離の診断が困難な場合も多い<sup>1)</sup>．今回，内頸動脈（internal carotid artery: ICA）C2解離による動脈閉塞により脳梗塞を生じたが，術前に解離の診断が困難であり，診断的脳血管撮影時に解離部からくも膜下出血（subarachnoid hemorrhage: SAH）を生じた1例を経験したので報告する．

## 【症例提示】

症例：60歳，女性

既往歴：高血圧，子宮筋腫，片頭痛

現病歴：来院1週間ほど前より右半身のしびれと頭痛を自覚．来院日午前，右片麻痺，構音障害が出現したため当院へ救急搬送された．

入院時現症：血圧；153/91mmHg，脈拍；65/分，整，意識レベル；Japan Coma Scale (JCS)；I-3，National Institutes of Health Stroke Scale (NIHSS)；20/42（右半側空間無視，構音障害，右不全片麻痺）

画像所見：MRI 拡散強調画像（diffusion weighted image: DWI）では左中大脳動脈（middle cerebral artery: MCA）領域に散在性の高信号を認めた（Fig. 1-A, B）．DWI-Alberta Stroke Program Early CT Score (ASPECTS) は6点であった．MRAでは左ICAが起始部より描出されず，前交通動脈（anterior communicating artery: AcomA）を介し対側から左前大脳動脈（anterior cerebral artery: ACA），MCA M1まで描出された（Fig. 1-C, D）．また右内頸動脈-前

脈絡叢動脈分岐部に小型の動脈瘤を認めた．造影灌流自動解析ソフト（RAPID [version 4.9.2.2, iSchemaView, Menlo Park, CA]）では虚血性コア体積（apparent diffusion coefficient: ADC  $< 620 \times 10^{-6} \text{mm}^2/\text{sec}$ ）は 13ml, ペナンプラを表す Tmax  $> 6.0 \text{sec}$  の体積は 180ml であり, mismatch ratio は 13.1 であった (Fig. 2-A, B). 頸部血管エコーでは左 ICA 起始部に収縮期最高血流速度（peak systolic velocity: PSV）2.3m/sec と計測される狭窄病変を認めた (Fig. 1-E, F).

入院後経過：左 ICA 狭窄部を塞栓源とした artery to artery embolism による左 MCA M1 閉塞と初期診断した．発症時刻が不明なため tissue-type plasminogen activator（t-PA）静注療法は施行しなかった．脳血管撮影及び血行再建術を施行することとし，右大腿動脈を穿刺，ヘパリン 5000 単位の全身投与及びステント留置を前提としてアスピリン 200mg, クロピドグレル 300mg の loading を行い，9Fr Optimo（東海メディカルプロダクツ，愛知）を左総頸動脈（common carotid artery: CCA）に誘導した．左 CCA 造影では，左 ICA 起始部に高度狭窄を認めたが (Fig. 3-A)，遠位側である左 MCA 閉塞の治療を先行するため狭窄を通過し，Penumbra 5MAX ACE（メディコスヒラタ，大阪）より造影を行ったところ，左 ICA C2 から造影剤の漏出を認め (Fig. 3-B, C)，直後の conebeam CT では広範な SAH を認めた (Fig. 3-D)．出血前にはマイクロガイドワイヤーなどいずれのデバイスも C2 病変部を通過していなかった．直ちに Optimo のバルーンによる左 CCA の遮断を行い，プロタミン 50mg を用いたヘパリンの中和，鎮静，降圧，挿管管理を開始した．

右内頸動脈瘤を認めていたため、左内頸動脈瘤の存在を疑いその破裂と考えたが、診断目的で 3D rotational angiography (3D-RA) を施行したところ、左 ICA C2 から C1 にかけての紡錘状拡張を認め、ICA 解離による脳梗塞及び SAH と診断した。止血及び再出血予防のため、前脈絡叢動脈の閉塞は避けられないが、internal trapping (IT) を施行することとした。Traxcess (テルモ、東京) で ICA C2 を病変通過し、続いて SL-10 (Stryker, MI, U.S.A) を左 MCA M1 まで先進させた。解離は M1 まで及んでいないと判断し、AcomA を介した対側からの血流を保持するため、左 ICA 先端部を保持する形で左 ICA C1 から眼動脈分岐部にかけて計 15 本のコイルを用いて閉塞した (Fig. 4-A, B)。IT 後の左 ICA 造影では、解離部の完全閉塞を確認した (Fig. 4-C, D)。右 ICA 造影では、AcomA を介して左 MCA 上行枝が描出されたが、解離部血栓の遠位塞栓により、左 A2 及び左 MCA 下降枝の閉塞を認めた (Fig. 4-E, F)。血管内治療後の CT で急性水頭症を認め、水頭症解除及び SAH 後の頭蓋内圧をコントロールするため、脳室ドレナージ術を施行した。

術後経過：術翌日の DWI では、左 ACA 及び MCA 領域に広範な高信号域を認めた (Fig. 5-A, B)。術後 2 週間目に施行した脳血管撮影では、左 ICA は描出されず、AcomA を介して左 ACA A1 および左 MCA M1 から左 MCA 上行枝の描出を認めた (Fig. 5-D, E)。術後は浸透圧利尿薬による脳浮腫治療、及び SAH に伴う脳血管攣縮予防のため塩酸ファスジルの点滴静注を施行したが、出血性梗塞に対する懸念から、抗血栓療法は行わなかった。術後 7 日目には脳浮腫は改善傾向となり、人工呼吸器を離脱し抜管を施行した。術後 2 週

間目には脳室ドレナージを抜去，退院時右麻痺，運動性失語が残存し，modified Rankin Scale スコア 4 でリハビリ目的に転院となった．

### 【考察】

本邦において，非外傷性頭蓋内動脈解離は脳卒中全体の 0.7%を占め，性別は男性が 76.1%，女性が 23.9%と男性に多い<sup>2)</sup>．発症年齢は虚血型で 40-49 歳，出血型で 50-59 歳にピークがある<sup>2)</sup>．解離部位は椎骨脳底動脈系に多く，内頸動脈解離は欧米と異なり比較的稀である<sup>1,2)</sup>．山浦ら<sup>1)</sup>によると，非外傷性頭蓋内動脈解離 322 例のうち 299 例（93%）が椎骨脳底動脈系であり，内頸動脈解離は 10 例（3%）にすぎなかった．解離の内訳は虚血発症が 76.1%，出血発症が 28.1%であり<sup>1)</sup>，かつては椎骨脳底動脈系で出血発症が多いのに対し，ICA 系では虚血発症が多いと報告されていたが<sup>2)</sup>，最近では椎骨脳底動脈系であっても虚血例が多いとの報告もみられる<sup>3)</sup>．非外傷性頭蓋内動脈解離による脳梗塞を発症し，経過中に SAH をきたした例は，椎骨脳底動脈系で報告が多く<sup>4-7)</sup>，ICA 系では C2 や ACA での報告が散見される<sup>8-11)</sup>．脳梗塞に SAH を併発した過去の報告では，死亡例や重篤な後遺症が残存した症例もあり，予後不良であった<sup>4-11)</sup>．山浦らの全国調査<sup>1)</sup>によると，虚血発症後の SAH 合併率は 3.4%（4/118）と低いが，死亡率は 75%（3/4）に及んでいた．解離と初期診断されれば，虚血発症では保存的加療で予後が比較的良好であるのに対し，出血発症では外科治療が施され予後が不良な場合も多い<sup>11)</sup>．

ICA C2 部の解離で虚血発症し，血管撮影時の破裂により SAH を

合併した症例は、今回文献を渉猟した限りでは報告がなかった。

内頸動脈解離の臨床症状は、①頭痛や顔面、頸部の片側性の疼痛(66%)、②同側の Horner 徴候 (<50%)、③数時間～数日後の脳虚血(50～95%)であり、このうち2つを満たせば本疾患の可能性が高い<sup>12)</sup>。本症例では①片側性の頭痛、③右半身のしびれから1週間後の脳虚血があり、心房細動などの不整脈を認めず、病歴も脳塞栓症としては非典型的であったことから、解離を考慮すべき病歴ではあったが、片頭痛を既往に持つ患者であり、特異的所見と判断するに至らなかった。

画像診断上は、脳血管撮影あるいは MRI, MRA において intimal flap または double lumen が認められ、脳血管撮影で pearl and string sign, string sign のいずれかが認められると確実<sup>13)</sup>とされる。、解離を疑う場合、time of flight (TOF)法、3D-GdT1 または T1-SPACE における血管外径の拡張所見も診断に有用である<sup>14,15)</sup>。本症例では症状から解離を疑うことが困難であったため、MRI はルーチン撮像 (DWI, FLAIR, T2 star, MRA) のみを施行していた。また、内腔閉塞のため MRI では flow void が消失し、TOF 法においても intimal flap や double lumen の判断ができず、脳血管撮影前に解離の診断をすることは困難であった。

解離の発生機序については、高血圧などの血行力学的負荷により内弾性板が脆弱となり、急激に断裂し entry を形成すると言われて<sup>16)</sup>いる。内弾性板と中膜の間に解離が進行すると、血腫が内腔を狭小化し狭窄あるいは閉塞を生じ (subintimal type)、外膜に及ぶと拡張・破裂し SAH を生じる (subadventitial type)<sup>17)</sup>。



本症例においては、解離部の内腔閉塞による広範な低灌流、及び解離部を塞栓源とした左 MCA M1 の動脈原性塞栓による脳梗塞を生じ、5MAX ACE 誘導後の初回撮影で SAH を生じた。また、本症例では ICA 起始部に狭窄病変が存在したため、5MAX ACE が狭窄部に wedge したために、狭窄部と解離部の間が閉鎖空間もしくは半閉鎖空間となり、閉鎖空間内での造影剤の注入が血管内圧を上昇させ、破裂の trigger となった可能性は否定できない。鑑別として左内頸動脈起始部から解離が連続していた可能性が考えられるが、頸部エコー所見で ICA 起始部狭窄病変は典型的なプラーク像を示しており、解離を疑う intimal flap や偽腔内血栓を示唆する低輝度は認めず、また SAH を生じた際の左内頸動脈撮影で C3 から C5 にかけても解離を疑う形態変化を認めなかったため否定的である。また、C2 に解離が存在せず、ICA 起始部狭窄病変と MCA M1 閉塞の空間に造影剤を圧入したことにより正常な C2 の破裂が生じた可能性が考えられるが、その場合左 ACA A1 に造影剤の outlet が残されており、また造影剤の圧入のみで正常血管が解離した報告は今回渉猟した限り存在せず、可能性は低いと考えられる。

診断的脳血管撮影中の出血は破裂動脈瘤において散見されるが<sup>18,19)</sup>、手技に伴う破裂か偶発的事象なのかは明らかにされていない。斎藤ら<sup>18)</sup>は破裂動脈瘤の再出血と造影剤の注入量には無関係であるとし、小宮山ら<sup>19)</sup>も同様の報告をしているが、造影剤の注入中は特に注入部付近で血管内圧が上昇するとされ<sup>20)</sup>、検査中の破裂との関係が示唆される。SAH において、かつては脳血管撮影中の再出血が発症 6 時間以内に多く、この間は脳血管撮影を控えるべきとの報

告<sup>19)</sup>もあったが、近年では DSA 装置の解像度やコントラストが上昇し、造影剤の注入量・速度も以前に比して減少していると考えられ、血管撮影中の出血は減少している可能性がある。ICA 解離において同様の報告は存在しないが、tandem lesion のうち先行する頭痛や神経所見を認める例では、解離の可能性を考慮し、脳血管撮影時には特に注意した slow injection を行うべきである。特に本症例のように頭蓋外内頸動脈狭窄症 (internal carotid artery stenosis: ICS) を有する例では、カテーテル挿入により ICS と解離部の間が閉鎖空間となる可能性に留意し、圧入に注意すべきである。

出血例に対する外科治療は、止血及び再出血予防のため破綻した母血管を閉塞することが必要であり、直達術による trapping もしくは血管内治療による IT、あるいはこれらに bypass を併用したものが有効と考えられる<sup>15)</sup>。血管形成的 clipping や wrapping は entry の閉鎖が困難であり<sup>8)</sup>、再出血防止の点で trapping や IT に劣ると考えられる。IT は診断脳血管撮影に引き続いて施行できるという利点があり、本症例でも IT を可及的早急に施行した。治療で減少する順行性血流を補うため適切な bypass の併用が望ましいとの報告もあるが<sup>8)</sup>、本症例においては AcomA を介した左 MCA への血流を認め、左 MCA M2 に血栓が存在し、発症から時間が経過していたことから施行しなかった。

## 【結語】

ICA C2 部の閉塞及び動脈原性塞栓による脳梗塞で発症し、脳血管撮影時に SAH を生じたため、再破裂予防目的に IT を施行した

ICA 解離の 1 例を報告した．先行する頭痛や神経症状を伴う tandem lesion では，解離の可能性を考慮し，特に ICS を有する症例では脳血管撮影に際して圧入を予防するため，慎重な injection を行う必要があると思われた．

【利益相反の開示】

筆頭著者及び共著者全員が利益相反はない．

【文献】

- 1) Yamaura A, Yoshimoto T, Hashimoto N, et al. Nationwide study of nontraumatic intracranial arterial dissection: clinical features and outcome. *Surg Cereb Stroke* 1998;26:79–86
- 2) Kobayashi S. *Stroke databank* 2015. Tokyo, Nakayama Shoten, 2015
- 3) Takagi M. Cerebral arterial dissection. *Brain and Nerve* 2006;58:1115–1123
- 4) Inagaki T, Saito K, Hirano A, et al. Vertebral arterial dissection with subarachnoid hemorrhage after ischemic onset. *No Shinkei Geka* 2000;28:997–1002
- 5) Matsushige T, Kurisu K, Arita K, et al. A case of a vertebral dissecting aneurysm initially manifesting as ischemic stroke and secondary subarachnoid hemorrhage. *Jpn J Neurosurg* 2001;10:682–687
- 6) Naito I, Iwai T, Sasaki T: Management of intracranial vertebral artery dissections initially presenting without subarachnoid hemorrhage. *Neurosurgery* 2002;51:930–938.
- 7) Tsutsumi M, Kawano T, Kawaguchi T, et al. Dissecting aneurysm of the vertebral artery causing subarachnoid hemorrhage after non-hemorrhagic infarction. Case report. *Neurol Med Chir* 2000;40:628–631
- 8) Arimura K, Hitotsumatsu T, Ishido K, et al. Non-traumatic anterior cerebral artery dissection with cerebral infarction

- followed by subarachnoid hemorrhage treated by trapping and bypass: a case report. *Jpn J Neurosurg* 2007;16:863–867
- 9) Muramoto E, Ogino T, Osato T, et al. A case of dissecting aneurysm of the intracranial internal carotid artery, which presented with cerebral infarction followed by aneurysmal dilatation and treated with Bypass Surgery. *Journal of Hokkaido Brain Research Foundation* 2009;12:79–84
  - 10) Honda N, Yuge T, Miyagi J, et al. A surgical case of dissecting aneurysm of the anterior cerebral artery. *Jpn J Neurosurg* 1997;6:634–638
  - 11) Nishino A, Suzuki I, Sakai K, et al. Clinical manifestations and treatment strategy for non hemorrhagic cerebral arterial dissection: analysis of 68 cases. *Surg Cereb Stroke* 2005;33:414–421
  - 12) Schievink WI. Spontaneous dissection of the carotid and vertebral arteries. *N Engl J Med* 2001;344:898–906
  - 13) Nagoya H, Takeda H, Dembo T, et al. Clinical features of 10 patients with spontaneous cervical internal carotid artery dissection. *Jpn J Stroke* 33;2011:59–66
  - 14) Kanoto M, Hosoya T. Diagnosis of Intracranial Artery Dissection. *Neurol Med Chir* 2016;56:524–533.
  - 15) Cuvinciuc V, Viallon M, Momjian-Mayor I, et al. 3D fat-saturated T1 SPACE sequence for the diagnosis of cervical artery dissection. *Neuroradiology* 2013;55:595–602.

- 16) Mizutani T, Kojima H, Asamoto S, et al. Pathological mechanism and three-dimensional structure of cerebral, dissecting aneurysms. J Neurosurg 2001;94:712-717
- 17) Tanikawa R, Anei R, Izumi N, et al. Strategy of treatment for anterior cerebral artery dissection. Surg Cereb Stroke 1999;27:433-438
- 18) Saitoh H, Hayakawa K, Nishimura K, et al. Rerupture of cerebral aneurysms during angiography. AJNR Am J Neuroradiol 1995;16:539-542
- 19) Komiyama M, Tamura K, Nagata Y, et al. Aneurysmal rupture during angiography. Neurosurgery 1993;33:798-803
- 20) Stoeter P, Prey N, Hoffmann C, et al. Doppler sonographic examination of the arterial flow in the carotid and supratrochlear arteries during carotid angiography. Neuroradiology 1984;26:199-207

【図表の説明】

Fig. 1 MRI on admission.

A, B: Diffusion weighted image (DWI) showed small acute infarctions in the left middle cerebral artery (MCA) territory.

C, D: Left ICA was not visualized on MRA and distal M1 segment of the left MCA was obstructed.

E, F: Carotid ultrasonography image of the left internal carotid artery showed stenosis with high echoic plaque. Peak systolic velocity was 2.3m/sec. There was no evidence of dissection in cervical carotid artery.

Fig. 2 An automated image postprocessing system (RAPID) on admission.

A: Diffusion weighted image (DWI) images overlaid with stroke core identified using apparent diffusion coefficient threshold. Estimated stroke core was 13 ml.

B: Tmax maps with green overlay for regions with abnormal flow ( $T_{max} > 6\text{sec}$ ). Estimated volume of delayed flow was 170 ml. Diffusion-perfusion mismatch ratio was 13.1.

Fig. 3 Pre- and intra-operative angiography.

A: Preoperative left carotid angiography showed severe stenosis of internal carotid artery (ICA) at the level of its bifurcation.

B, C: Initial left ICA angiography after advancing Penumbra 5MAX

ACE showed active bleeding into the subarachnoid space from C2 segment of the left ICA.

D: Conebeam CT during the procedure revealed leakage of contrast medium and diffuse subarachnoid hemorrhage.

E, F: Three-dimensional angiography revealed irregular dilatation at C1 and C2 segments of the left ICA which suspects the dissection.

Fig. 4 Post-operative angiography.

A-D: Left internal carotid artery (ICA) angiography demonstrated the complete obliteration of C2 segment of the left ICA.

E, F: Collateral flow to the left middle cerebral artery via anterior communicating artery was observed. A2 segment of the left anterior cerebral artery and inferior trunk of the left middle cerebral artery were obstructed due to thrombus migration.

Fig. 5 Follow-up MRI and angiography.

A, B: Post-operative day 1 diffusion weighted image showed extensive hemispheric cerebral infarction of the left middle cerebral artery (MCA) and anterior cerebral artery territory.

C: Post-operative day 14 left carotid angiography revealed the obliteration of internal carotid artery (ICA). A2 segment of the left anterior cerebral artery and inferior trunk of the left MCA were obstructed same as post-operative DSA.

D, E: Collateral flow to the left MCA via anterior communicating



artery was still observed.

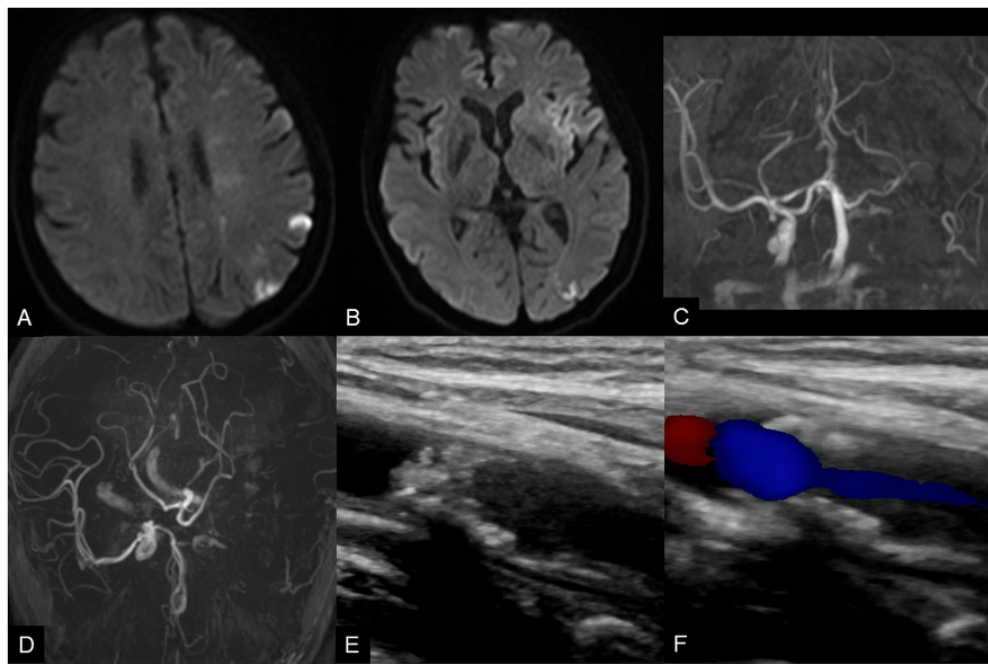


Figure 1

75x50mm (300 x 300 DPI)

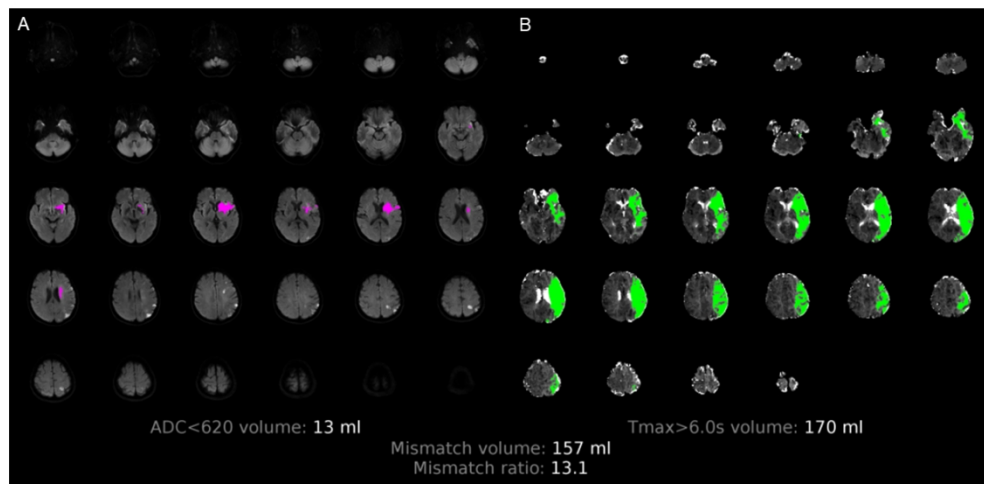


Figure 2

92x45mm (350 x 350 DPI)

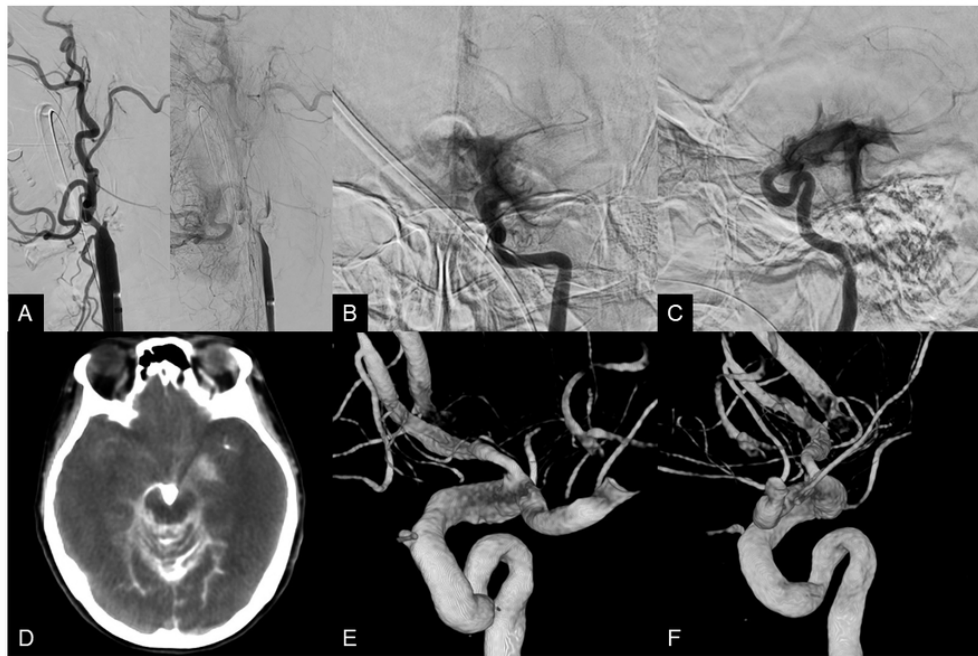


Figure 3

75x50mm (300 x 300 DPI)

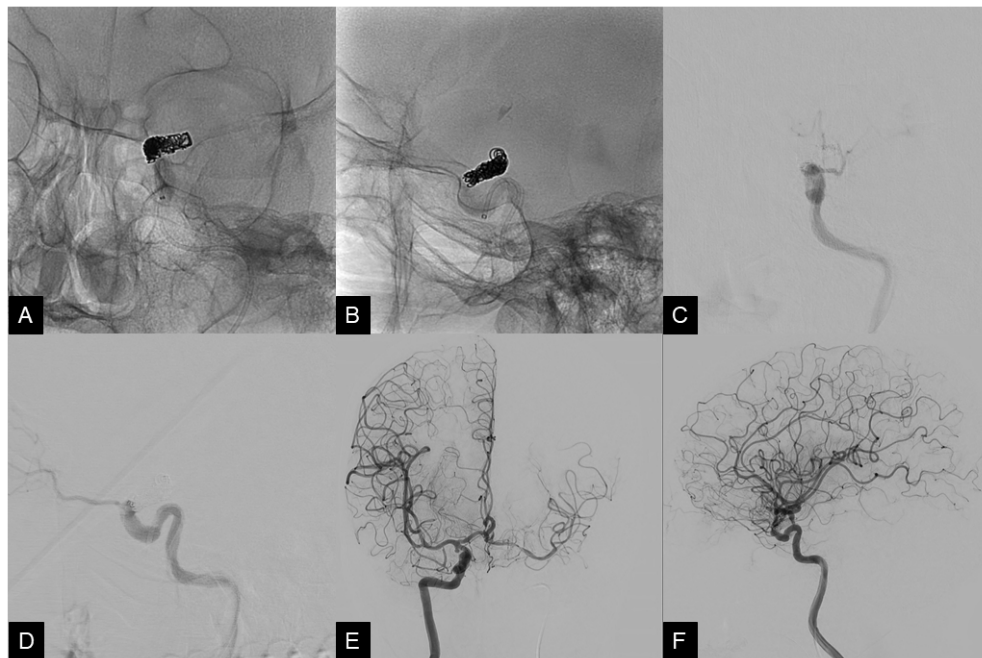


Figure 4

75x50mm (350 x 350 DPI)

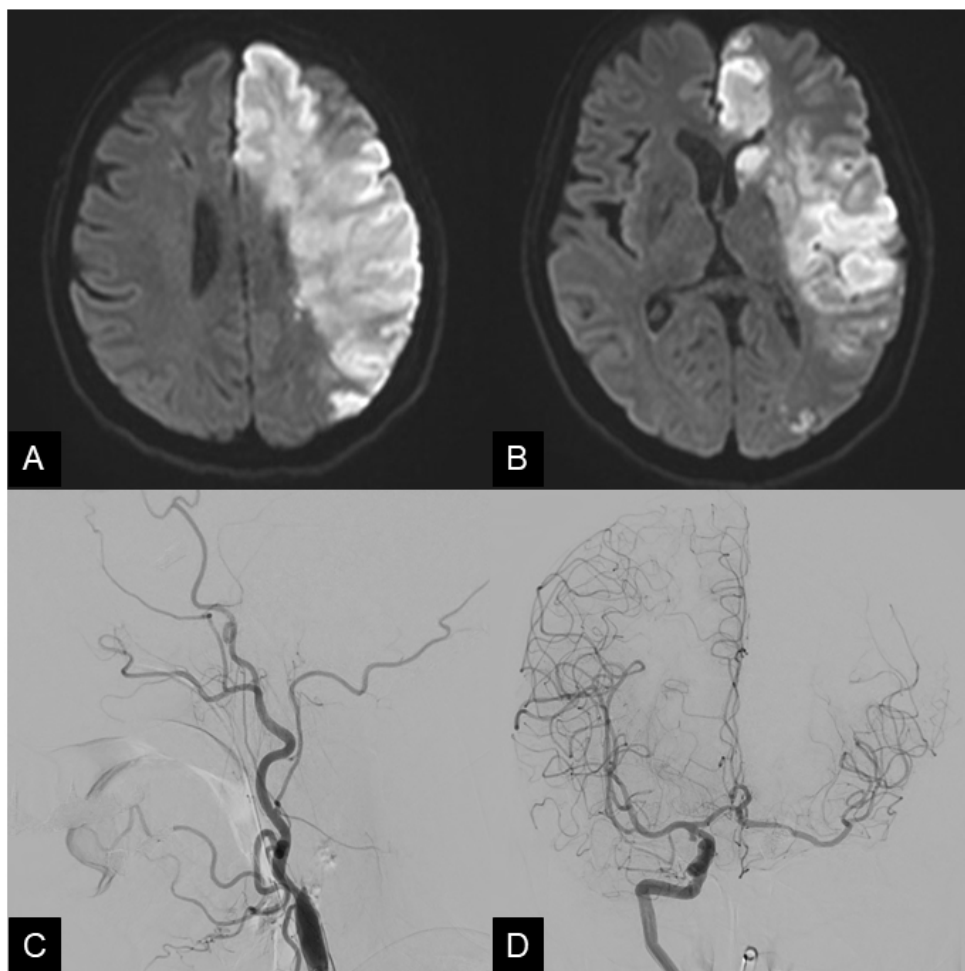


Figure 5

51x50mm (350 x 350 DPI)