

- 1) 論文種別：原著
- 2) 論文タイトル：
頰椎脱臼骨折に伴う椎骨動脈損傷評価と脱臼整復術前処置
- 3) 全員の著者名：
菅康郎^{1,2}，三島有美子^{1,2}，吉田賢作^{1,2}，肥後拓磨^{1,2}，西岡和輝^{1,2}，大石英則^{2,3}
- 4) 著者全員の所属施設・部署：
東京都立広尾病院脳神経外科¹，順天堂大学医学部脳神経外科²，
順天堂大学医学部脳神経血管内治療学講座³
- 5) 連絡著者の氏名・連絡先：
菅康郎
所属；東京都立広尾病院脳神経外科
住所；〒150-0013 東京都渋谷区恵比寿 2-34-10
電話番号；03-3444-1181
メールアドレス；yssuga@juntendo.ac.jp
- 6) キーワード：頰椎脱臼骨折、椎骨動脈損傷、母血管閉塞
- 7) 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。

頌椎脱臼骨折に伴う椎骨動脈損傷評価と脱臼整復術前処置

和文要旨：

【目的】頌椎脱臼骨折では高率に椎骨動脈損傷（VAI）を来すため、脱臼整復に際しては病変部に形成された血栓による脳塞栓症の合併が問題となる。そこで脱臼整復を要した頌椎脱臼骨折における治療成績と脱臼整復前の母血管閉塞（PAO）の有効性について報告する。

【方法】2018年1月から2020年12月までに当院で脱臼整復を施行した頌椎脱臼骨折8例を対象とし、整復前処置及び整復後経過について後方視的に検討した。

【結果】脱臼部位はC4/5及びC6/7が各2例、C5/6が4例で全例にlocked facetを伴っていた。両側性、片側性各4例で、片側性のうち2例で同側の椎骨動脈閉塞（VAO）が確認されたが、6例はVAIを認めなかった。VAO合併2例に対して脱臼整復前に血管内治療で罹患血管の母血管閉塞を行い、その他の症例は無処置で整復した。全例で整復後の脳塞栓症を認めず、のちに脊椎固定術を施行した。1例のみ脊髄損傷由来の呼吸筋麻痺で死亡したが、7例は良好な転帰を得た。

【結論】頌椎脱臼骨折に対し脱臼整復を行う際、整復前の時点でVAOを呈している症例では整復前のPAOが整復後の脳塞栓症予防に有効である可能性がある。

本文：

【緒言】

頚椎損傷における椎骨動脈損傷（VAI）の合併は 19-47%で、VAI による脳梗塞合併率は 0-54%、死亡率は 0-18%とされる¹⁾⁻⁴⁾。また頚椎損傷例の 7-20%は VAI の結果として椎骨動脈閉塞（VAO）を呈する^{4),5)}。逆に VAI の 70%以上に頚椎骨折を認める⁶⁾が、椎間関節脱臼及び亜脱臼と横突孔骨折に VAI 合併率が高く、それぞれ 80%、75%、46%とされる^{1),3),7)-9)}。しかし症例毎に病態や合併損傷が異なるため、その治療に関しては経過観察、抗血栓薬、罹患椎骨動脈の母血管閉塞術（PAO）などの報告が混在し一定の見解がない^{1),2),9),10)}。中でも脱臼整復や固定術を要する症例では、VAI 病変部に形成された血栓が整復に伴う椎骨動脈の復位に伴い飛散することによる脳塞栓症のリスク高く、しばしば致命的となる^{11),12)}。そのため、我々は脱臼整復を要した頚椎脱臼骨折における治療成績と脱臼整復前の血管内治療による PAO の有効性について自験例の後方視的検討と文献的考察を合わせて報告する。

【対象と方法】

対象症例

2018 年 1 月から 2020 年 12 月の間に当院に搬送され、脱臼整復処置を要した頚椎脱臼骨折を対象とした。なお意識障害により神経症状評価が困難な症例は除外対象とした。

検討項目は年齢、性別、施行した脱臼整復前処置、受傷機転、脱臼骨折の受傷部位、椎骨動脈の dominancy、脱臼整復前後の VAI 及び脳塞栓症の有無、脊椎固定術の術式、入院時及び退院時の American Spinal Cord Association impairment scale (ASIA scale)、退院時 modified Rankin

scale (mRS) とした。

神経放射線学的診断

入院時に頭部及び頸椎単純 CT, 脊髄 MRI を施行し頭蓋内及び脊椎脊髄損傷を評価した。VAI に関しては, 脱臼整復前は CTA を第一選択として評価した。整復後は MRA を第一選択とし, 整復前の CTA もしくは MRA に比して変化を認めた場合に CTA を追加することとした。また脳塞栓症に関しては可能な限り整復前後で頭部 MRI の拡散強調画像 (DWI) を行い比較した。

脱臼整復前の血管内治療

上記神経放射線学的診断により VAO と診断され, かつ脳虚血症状のない症例に対し, 脳塞栓症予防を目的として血管内治療による PAO を施行した。閉塞血管に対する PAO であり balloon occlusion test (BOT) は不要とした。局所麻酔下に右総大腿動脈に 5F ロングシース (メディキット, 東京) を挿入し, 診断血管造影で側副血行路を評価したのちに 5F Envoy MPC (Johnson & Johnson, New Brunswick, NJ, USA) を治療対象とする椎骨動脈損傷部近位に留置した。全身ヘパリン化は施行しなかった。ついで Excelsior 1018 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) 1 本を病変部に留置し, simple technique で損傷部近位の PAO (coil embolization) を施行した。なお術後も抗血栓療法は施行していない。

研究倫理指針

本研究は当院臨床研究倫理審査委員会で承認され, 1964 年のヘルシンキ宣言とその後の改訂で定められた倫理基準に従って行われた。

【結果】

対象症例は全 8 例で, いずれも除外基準には該当しなかった。全 8 例について Table 1 に示す。男性 5 例, 女性 3 例で平均年齢は 56.5 (±20.1) 歳

であった。受傷機転は 7 例が頸部過屈曲で、脱臼部位は C4/5 及び C6/7 が各 2 例、C5/6 が 4 例であった。片側性・両側性各 4 例で全例に locked facet を伴っていた。C4/5 及び C5/6 の片側例各 1 例で同側の VA0 を認め、その他は VAI を認めなかった。全例で脳神経症状を認めず、VA0 合併の 2 例に対し脱臼整復前に血管内治療で罹患血管の PA0 を行い、その他は無処置で整復した。PA0 施行例のうち case1 が非優位側椎骨動脈の病変で、case2 は優位側病変であった。受傷から PA0 終了までに要した時間は、case1 では 15 時間 50 分、case2 では 6 時間 40 分であった。また、PA0 終了から脱臼整復開始までの間隔は case1 では 2 時間、case2 では 1 時間 20 分であった。全 8 例で経過中に抗血栓薬は投与しなかった。全例で整復後に脳虚血症状及び頭部 MRI 上の新規虚血巣は出現しなかった。整復後の頸部 MRA ないし CTA では全例に新たな VAI は認められなかった。その後全例に脊椎固定術を施行した。1 例のみ脊髄損傷由来の呼吸筋麻痺で死亡したが、7 例は良好な転帰を得た。

代表症例

case2

60 歳男性。転落による頸部過屈曲で受傷。来院時脳神経障害なく、左側優位の不全四肢麻痺と左上肢及び両下肢の感覚障害を呈していた。頸椎 CT 及び頸部 CTA で左 C5/6 の locked facet を伴う脱臼骨折と同部位での VA0 を認めた。ただし閉塞部以遠の椎骨動脈は良好に描出されており、側副血行路の関与が示唆された。対側の右椎骨動脈は後下小脳動脈分枝部遠位で低形成であった。血管造影では、costocervical trunk の deep cervical branch、後頭動脈の muscular branch から閉塞部遠位の左椎骨動脈への側副血流が認められ、右椎骨動脈も低形成ではあるが脳底動脈へ順行性に

灌流していた。これらの血流により頭蓋内後方循環の灌流は維持されており、脳虚血症状も無かったため、脳塞栓症予防を目的に左椎骨動脈の PAO を施行した (Figure 1)。引き続き整形外科で脱臼整復及び前方除圧固定術を施行。いずれの処置でも合併症なく、mRS3 でリハビリ転院した。

【考察】

VAI は横突孔により固定されより高い剪断力を受ける V2 segment に多く、頸部の過屈曲または過伸展により隣接横突孔間で椎骨動脈が過伸展されて生じる^{5),6)}。VAI を合併しやすい椎間に関し一定の見解は無い^{3),6),11)}が、自験例では C6/7 の 2 例には VAI を認めていない。これは他の椎間に比べ C6/7 では椎骨動脈の可動性が大きく剪断力に対する干渉作用が高いためと推察される。また片側及び両側脱臼の VAI 合併率に関する報告は渉猟しえなかったが、自験例では前者で 4 例中 2 例と高く、椎骨動脈の捻れが影響していると推察される。

VAI の病態に関しては、骨折片による動脈壁損傷や動脈壁伸展に伴う解離がその本態であるとの報告^{5),6),13)}が多い。経過中に内膜損傷部で形成された血栓による脳塞栓症や、壁在血栓による同部の狭窄あるいは閉塞に伴う血行力学的脳虚血で神経予後が悪化する^{3),13)}。他には血管断裂による偽性動脈瘤や動静脈瘻の報告もある^{11),13)}。自験例では 2 例に VAO を認めて脱臼整復前に PAO を施行し、残りの 6 例には VAI を認めなかったため無処置で脱臼整復を施行し、いずれも良好な結果を得ている。そこで頸椎脱臼骨折に合併した VAO に対する脱臼整復前の PAO について更に文献的考察を加えた。

まず VAO の症状発現に関わる因子として側副血行の発達程度、椎骨動脈の dominancy、動脈硬化、加齢が報告されている⁷⁾。片側 VAO では側副血行

路の恩恵により多くの症例が無症状で経過し、両側 VAO では重篤な後遺症を残すか死亡に至ることが多い⁵⁾。しかし片側性であっても血栓飛散による脳底動脈閉塞 (BAO) をきたすと重篤な後遺症及び死亡の原因になる^{7), 8), 9), 12)}。一方で両側性 VAO でも BAO がなければ、側副血行路の恩恵により症状が軽微という症例も稀に存在する^{5), 8)}。つまり BAO をはじめとする脳主幹動脈への塞栓症を如何に回避するかが VAO 合併例の脱臼整復において最も重要な点と考えられる。

そこで VAO 合併例に関して脱臼整復前の処置について渉猟すると、整復を抗血栓薬投与下に行う方法と血管内治療による PAO 施行後に行う方法があり、現状では controversial である。

まず抗血栓薬投与下での脱臼整復に関しては、無症候例では安全であるとする報告¹⁴⁾や、整復後のアスピリン投与で脳塞栓症を回避できるとする報告⁹⁾がある。また早期の抗凝固療法開始と脱臼整復及び脊椎固定術が血栓形成抑制と脳塞栓症予防に有効であるとの報告^{4), 6), 8)}もある。しかし実際には整復に伴い BAO で死亡した症例¹²⁾や多発脳塞栓症を生じた症例¹⁰⁾もあり、その安全性には疑問が残る。

一方血管内治療による PAO 先行後の脱臼整復に関しては、PAO 及び脱臼整復双方で合併症なく経過したとの報告^{2), 3), 11)}がある。Indo ら¹¹⁾は急性期に脊椎固定術を要した VAO 合併頸椎骨折 23 例の後方視的検討で、術前に PAO を施行しなかった 9 例中 5 例に術後脳梗塞が同定され、術前 PAO を施行した 14 例では皆無で、単変量解析で術前 PAO のみが術後脳梗塞予防と関連があったと報告している。このうち整復処置をした 19 例だけを抽出しても同様の傾向で、PAO を施行しなかった 9 例中 5 例に術後脳梗塞を認め、PAO を施行した 10 例ではこれを認めていない。この結果から、脱臼

整備処置を要する VAO 症例では、既に閉塞している血管を塞栓する PAO のリスクは低く脳塞栓予防効果は大きいと考えられ、妥当な治療法といえる¹¹⁾。

PAO 施行前の BOT に関しては、搬送時に閉塞または高度狭窄を呈する場合は、その時点で既に機能的な閉塞試験に対して耐性があると判断でき、BOT は必要ない¹⁵⁾との報告がある。自験例でも優位側及び非優位側の VAO 各 1 例に PAO を施行し良好な結果を得ており、上記に矛盾しない。

なお PAO で塞栓する部位に関しては、病変部近位のみでの閉塞とする報告^{3), 11)}と病変部近位及び遠位の両端での閉塞、つまり internal trapping とする報告²⁾がある。我々は前者の方法で PAO を施行し、幸いにも脱臼整備後の脳塞栓症は経験していない。我々が損傷部近位のみ PAO にとどめる理由としては、可及的速やかに行われるべき脱臼整備に対する前処置という位置づけから、迅速に済ませる必要がある点がまず挙げられる。次に、trapping を行うには対側椎骨動脈からのアプローチが必要であり、それに付随して以下の合併症が生じうる点もその理由である。具体的には、潜在する可能性のある対側椎骨動脈損傷の悪化、致命的となりうる対側椎骨動脈の医原性損傷、患側閉塞下での対側 catheterization による脳底動脈灌流低下とそれに伴う虚血性合併症、などが考えられる。一方我々とは異なり internal trapping を採用する側の主張としては、病変部近位のみ PAO 後に vertebral artery stump syndrome^{16), 17), 18)}と類似の病態が発生することへの懸念が考えられる。vertebral artery stump syndrome とは、動脈硬化性の慢性椎骨動脈起始部閉塞の症例において、鎖骨下動脈分枝からの順行性側副血流が閉塞部遠位の stump 周辺に形成された血栓を頭蓋内へ運ぶことにより生じる脳塞栓症である。つま

り, internal trapping ではこれを回避すべく, 鎖骨下動脈分枝からの順行性側副血流が椎骨動脈に合流する部位の更に遠位で母血管閉塞を追加する. しかし慢性の椎骨動脈起始部閉塞と異なり閉塞遠位の頸部椎骨動脈への側副血行路の発達が乏しい PAO 直後においては stump syndrome が起きる可能性は低いと考えられる. 仮に stump syndrome が生じたとしても, 脳主幹動脈閉塞を起こすような大きな血栓の塞栓症を起こす可能性は更に低い. これら各処置の特徴と脱臼整復による脳主幹動脈への塞栓症を回避するという主目的を総合的に考え, 我々は簡便かつ安全で迅速に施行し得る損傷部近位の PAO を第一選択の手技として施行している.

本報告には下記の点で限界がある. 第一は単施設における少数例の後方視的研究であること, 第二は VA0 以外の VAI の症例が含まれていないこと, そして最後に長期成績が不明な点である. ゆえに今後症例の蓄積に加えて整理された randomized controlled trial が必要である.

【結語】

頸椎脱臼骨折に対し脱臼整復を行う際, 整復前の時点で VA0 を呈している症例では整復前の血管内治療による PAO が整復後の脳塞栓症予防に有効である可能性があり, これを行うことを考慮してもよい. ただし今後そのコンセンサスを得るためには, 更なる症例の蓄積と長期成績の追跡が必要と思われる.

【利益相反の開示】

本論文に関して, 筆頭著者ならびに共著者全員が開示すべき利益相反はない.

【文献】

1) Fujita Y, Aihara H, Nagashima H, et al: Clinical Features and

- Treatment Surgery of Vertebral Artery Injury Associated with Cervical Spine Trauma. *No Shinkei Geka* 2018; 46(8): 663-671.
- 2) Zou H, Wu J, Hu Y, et al: Unilateral vertebral artery injury in a patient with displaced upper cervical spine fractures: the treatment for one case of vertebral artery embolism. *Eur Spine J* 2018; 27: 409-414.
 - 3) Isaji T, Ohshima T, Nakura T, et al: Efficacy of Endovascular Proximal Occlusion before Direct Reposition Surgery of Blunt Cervical Fracture with Unilateral vertebral Injury. *NMC Case Report J* 2019; 6: 131-134.
 - 4) Foreman PM, Griessenauer CJ, Chua M, et al: Corrective spinal surgery may be protective against stroke in patients with blunt traumatic vertebral artery occlusion. *J Neurosurg Spine* 2015; 23: 665-670.
 - 5) Strickland B, Lewis CS, Pham MH: Bilateral Vertebral Artery Occlusion After Cervical Spine Fracture Dislocation. *World Neurosurg* 2019; 124: 304-309.
 - 6) Yaeger K, Mascitelli J, Kellner C, et al: Temporary vertebral artery occlusion after C3 fracture dislocation injury and spontaneous resolution following reduction and instrumented fusion: case report and literature review. *J Neurointervent Surg* 2017; 9: 1027-1030.
 - 7) Shibata T, Ogiichi T, Miyake T, et al: A Case of Basilar Artery Occlusion of Traumatic Vertebral Artery Dissection

- Successfully Managed by Endovascular Treatment. *No Shinkei Geka* 2003; 31(3): 311-316.
- 8) Simon RD: A rare complication of a unilateral vertebral artery occlusion, which resulted in a basilar emboli after a C5-C6 bifacet dislocation in an professional rugby player: case study. *The Spine Journal* 2011; 11: e1-e4.
- 9) Jayson A, Arnold BE, Gaurang VS, et al: Management and Outcomes of Patients Undergoing Surgery for Traumatic Cervical Fracture-subluxation Associated With an Asymptomatic Vertebral Artery Injury. *J Spinal Disord Tech* 2009; 22: 86-90.
- 10) Nakao Y, Terai H: Embolic brain infarction related to posttraumatic occlusion of vertebral artery resulting from cervical spine injury: a case report. *Journal of Medical Case Reports* 2014; 8: 344.
- 11) Indo M, Oya S, Shojima M, et al: Prevention of Thromboembolic Infarction After Surgery for Traumatic Cervical Fracture with Vertebral Artery Occlusion by Preoperative Endovascular Coil Embolization. *World Neurosurg* 2019; 129: e838-e844.
- 12) Tumialan LM, Theodore N: Basilar artery thrombosis after reduction of cervical spondyloptosis: a cautionary report. *J Neurosurg Spine* 2012; 16: 492-496.
- 13) Nagpal P, Policeni BA, Bathla G et al: Blunt Cerebrovascular Injuries: Advances in Screening, Imaging, and Management Trends. *AJNR Am J Neuroradiol* 2018; 39:406-14

- 14) Willis BK, Greiner F, Orrison WW, et al: The incidence of vertebral artery injury after midcervical spine fracture or subluxation. *Neurosurg* 1994; 34: 435-442.
- 15) Zoarski GH, Seth R: Safety of Unilateral Endovascular Occlusion of the Cervical Segment of the Vertebral Artery without Antecedent Balloon Test Occlusion. *AJNR Am J Neuroradiol* 2014; 35: 856-61.
- 16) Suzuki M, Dembo T, Hara W, et al: Verbral Artery Stump Syndrome. *Intern Med* 2018; 57: 733-736.
- 17) Nguyen TN, Raymond J, Mahmoud M, et al: Vertebral artery stump syndrome. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2008; 79: 91-92.
- 18) Kawano H, Inatomi Y, Hirano T, et al: Verbral artery stump syndrome in acute ischemic stroke. *J Neurol Sci* 2013; 324: 74-79.

【図表の説明】

Table 1. Patient characteristics.

Figure 1. (A) Right antero-lateral view of 3-dimensional CTA on admission revealed left vertebral artery occlusion. (B) Sagittal T2 weighted MRI showed spinal cord injury at C5/6. (C) (D) Posterior-anterior and lateral view of the angiogram of right vertebral artery showed its hypoplasty in the distal portion. (E) (F) The deep cervical artery from the costocervical trunk and the muscular branch of occipital artery anastomose to vertebral artery. (G) Contrast injection from guiding catheter before PAO

revealed complete occlusion of left vertebral artery at the site of VAI. (H) (I) Left oblique view of the angiogram of left subclavian artery after PAO.

Table 1. Patient characteristics

case	age/sex	pattern of injury	treatment before reduction	location	VA dominancy	pre reduction/operation			post reduction/operation			complication	mRS
						VAI	infarction	ASIA	Additional VAI	infarction	ASIA		
1	41/M	hyperflexion	PAO	Lt. C4/5	Rt.	Lt. VAO	none	E	none	none	E	none	1
2	60/M	hyperflexion	PAO	Lt. C5/6	Lt.	Lt. VAO	none	C	none	none	C	none	3
3	45/M	hyperflexion	none	Lt. C6/7	even	none	none	D	none	none	E	none	1
4	74/M	hyperflexion	none	Bil. C4/5	Rt.	none	none	A	none	none	B	none	6
5	83/F	hyperflexion	none	Bil. C6/7	Rt.	none	none	D	none	none	D	none	2
6	21/M	hyperflexion	none	Blt. C5/6	even	none	none	D	none	none	E	none	1
7	58/F	unknown	none	Lt. C5/6	even	none	none	C	none	none	D	none	2
8	70/F	hyperflexion	none	Bil. C5/6	Lt.	none	none	C	none	none	D	none	3

ASIA : American Spinal Cord Association impairment scale, mRS: modified Rankin scale, PAO: parent artery occlusion, VA : vertebral artery, VAI: vertebral artery injury

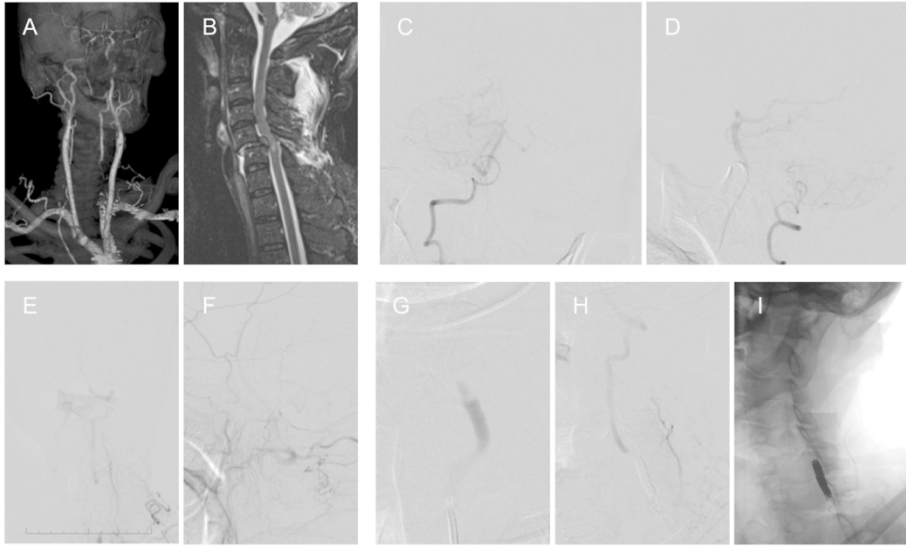


Fig.1 Radiological findings of case 2