

## 症例報告

### 頭痛発症時の CT/MRI/MRA で異常所見なく、7 日後に発生・破裂した椎骨動脈解離の 1 例

井上悟志<sup>1)</sup>、藤田敦史<sup>2)</sup>、篠田幸樹<sup>1)</sup>、山下俊輔<sup>1)</sup>、李 泰辰<sup>1)</sup>、黒田竜一<sup>1)</sup>、武田直也<sup>1)</sup>、潤井誠司郎<sup>1)</sup>、栗原英治<sup>1)</sup>、篠山隆司<sup>2)</sup>

1) 順心病院 脳神経外科

2) 神戸大学大学院 医学系研究科 脳神経外科学分野

#### 筆頭著者の連絡先

井上悟志

順心病院 脳神経外科

〒 675-0122

兵庫県加古川市別府町別府 865-1

電話 079-437-3555

FAX 079-437-6785

E-mail: [nsurg2000@yahoo.co.jp](mailto:nsurg2000@yahoo.co.jp)

**Key Words:** vertebral artery dissection, endovascular therapy, vessel wall imaging, natural history, diagnosis

図 2 点

本文 5556 字

#### 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：**椎骨動脈解離の破裂前に画像精査がなされた報告は少ない。頭痛発症時のCT、MRI、MRAで異常所見なく、7日後に発生・破裂した椎骨動脈解離の1例を経験したので報告する。

**症例：**51歳、女性。元来慢性頭痛あり。右後頸部のpin pointの痛みで当院救急受診し、CT、MRI (diffusion-weighted image、fluid-attenuated inversion recovery、basi-parallel anatomical scanning、MR cisternographyを含む)、MRAで異常所見なし。7日後に意識障害で搬送され、CTでくも膜下出血を、3D-CTAで右椎骨動脈解離を認め、血管内治療を行った。症状は徐々に改善し回復期リハビリテーション目的で転院した。

**結論：**稀な経過だが、同様の可能性を念頭に置くことは临床上重要である。

# 本文

## 緒言

椎骨動脈解離 (vertebral artery dissection; VAD) によるくも膜下出血 (subarachnoid hemorrhage; SAH) は先行頭痛を伴うことも多いが、VAD の破裂前に画像精査がなされた報告は少ない。今回、頭痛発症時の CT、MRI、MRA で異常所見なく、7 日後に発生・破裂した椎骨動脈解離 (VAD) の 1 例を経験したので報告する。本症例は、破裂予防の観点から非常に教育的であると同時に、VAD の破裂過程を考えるうえで貴重な症例と思われた。

## 症例提示

症例は 51 歳、女性元来、月経痛・肩凝りに伴う慢性頭痛があるという。右上後頭部の pin point の痛みを訴え、夜間 20 時に当院を救急受診した。初診時、神経学的有意所見なく、髄膜刺激徴候を認めず、頭部単純 CT (Fig. 1A)、MRA (Fig. 1B-D)、fluid-attenuated inversion recovery (FLAIR) (Fig. 1E)、MR cisternography (Fig. 1F)、basi-parallel anatomical scanning (BPAS, Fig. 1G)、diffusion-weighted image、T2 強調画像でいずれも異常所見なく帰宅した。家族によると、その後も痛みは持続していたが、特に変化はなかったという。

7 日後に、急な頭痛・嘔気を訴えたのち、トイレで意識レベルが低下し救急搬送された。病着時、Japan Coma Scale III-300、Glasgow Coma Scale E1V1M1 (3)、CT でびまん性 SAH を (Fig. 2A)、3D-CTA で右椎骨動脈 (vertebral artery; VA) の後下小脳動脈近位部に、以前に認められなかった拡張部を認めた (Fig. 2B、矢印)。VAD の破裂、Hunt and Hess grade 5、

WFNS grade 5、Fisher group 3 と診断した。

同日緊急で血管内治療を施行した。全身麻酔、全身ヘパリン化のもと、右大腿動脈から右 VA へ 4F ガイディングシース (Fubuki Dilator Kit、朝日インテック、愛知) を、左 VA へ造影カテーテルを留置した。術前 DSA で、右 VA の拡張部は背側に intimal flap を伴い、横径 7.8mm、長さ 8.2mm だった (Fig. 2C)。Excelsior SL10 (Stryker, Fremont, CA, USA) 90 度および 45 度を、Traxcess 14 (テルモ、東京) で拡張部に誘導し、SL10 90 度から Target 360 Soft 8mm×20cm (Stryker) を留置、SL10 45 度から同 7mm×15cm を追加し、コイル計 14 本で拡張部を塞栓したのち、コイル計 10 本で病変近位 VA を親血管閉塞し (Fig. 2D)、術後 DSA で完全閉塞を確認した (Fig. 2E)。

術後は、一時的に脳室ドレナージを要した他は著変なく経過した。注意力・短期記憶障害のため、第 45 病日に回復期リハビリ目的で転院、発症後 3.5 か月で自宅退院し、外来通院中 (modified Rankin Scale 2)。

## 考察

今回の症例は、後頸部痛出現時の画像診断で異常所見を認めず、7日後にSAHをきたし、VADを新規に認めた。VADが破裂する前に画像精査がなされていた稀な症例と考える。また、CT・MRI・MRAによる精査にも拘らず、今回のプロトコールでは、頭痛発症時の破裂前状態のVADの検出には至らず、のちの出血予測が困難だったという点は、日常診療上あるいは社会的にも極めて重要と思われた。

一般に、破裂VADは、77.8%に先行頭痛を認めるとされる<sup>1)</sup>。一方で、頭痛のみでの発症など、出血あるいは虚血病変を伴わずに画像上でVADと診断される所謂 non-stroke type VADの自然歴は良好とされ、その出血率は、本邦での全国調査<sup>2)</sup>では0.4%(出血例は230例中1例)、Mizutaniら<sup>1)</sup>の報告では1.0%(同98例中1例)、Kobayashiら<sup>3)</sup>の報告では0.9%(同113例中1例)といずれも低かった。ただし、これらの破裂を認めた3例のうち2例では、破裂前に抗血栓療法がなされていた<sup>2,3)</sup>。上述の全国調査<sup>2)</sup>によると、頭痛発症のVADの初期画像診断所見は、fusiform dilatation 41%、pearl and string sign 29%、string 14%、occlusion 7%、複数所見 5%、その他 4%となっているが、今回のように、当初は所見を認めないものについては言及がなかった。

VADの内膜形成や血管内腔の正常化は最短で15日で始まり、未破裂VADは診断時には既に治癒過程にあることも多いとされるが<sup>1)</sup>、経時的に増大する例もあり、Kaiら<sup>4)</sup>の報告では、未破裂VAD 100人のうち、mass effectで発症し急性期手術を行った4人を除く96人について、2週間、1、3、6、12、24か月後にMRI、MRAでフォローしたところ、5人で経過中に増大を認め治療を行ったが、破裂例は認めず、未破裂VADの自然歴は高危険では

ないが、増大あれば閉塞すべきとしている<sup>4)</sup>。Shibahara ら<sup>5)</sup>の未破裂 VAD 56 例の検討では、4 例で増大や新規の瘤形成を認め、うち 3 例で治療を要したが、いずれも 1 か月以内だったと報告している。ただし、これらの症例は、急性期に出血をきたした今回の症例とは異なり、時間的に画像フォローや外科的介入の余地がある点で、同様に考えてよいかは疑問である。

特殊な経過として、一側の VAD の治療中、対側に VAD が新規に出現し (contralateral *de novo* VAD)、出血をきたした報告が少ないながら存在する。一側の延髄梗塞で発症した VAD に対する保存的加療中、第 9 病日に SAH をきたし、対側に新規の VAD を認めた報告<sup>6)</sup>があり、本症例との類似点として、(1)第 1 および第 4 病日の MRA で対側 VA は正常であったこと、(2)短期間のうちに同部が増大し破裂に至ったこと、(3)破裂時に突然の意識障害をきたしたが、それまでは臨床症状に変化がなかったこと、(4)破裂前に抗血栓療法は行っていなかったこと、が挙げられる。著者らは、画像上で検出できなかった微細な血管壁の解離が、のちに増大し破裂に至った可能性を考慮し、MRI BPAS や vessel wall imaging による診断可能性に言及している。また、一側 VAD の親血管閉塞ののち対側に新規の VAD が出現する例もあり<sup>7)</sup>、血行動態変化が関与した可能性も示唆される。

本症例は、当初は画像で検出できない程度の微細な動脈解離が VA の血管壁に生じて頸部痛が出現し、その後 1 週間で、検出可能な大きさの瘤状変化に至り破裂した可能性が考えられた。初発症状であった頭痛は、部位からは VAD 発症と何らかの関連があると考えるのが妥当かと思われたが、髄膜刺激症状はなく、画像上も出血性・虚血性病変を認めず、血管内腔や外形にも異常を認めなかった。この時点で、何らかの血管壁の変化があった可能性は否定できないが、画像診断上、検出には至らなかった。血管内

腔や外形に変化を認めず、血管壁内の変化にとどまる『潜在的』VADについては、VADによるSAHの剖検例の43%で、肥厚内膜で被覆された内弾性板の微小な破断が、対側など、破裂したVADとは離れた部位に存在したという報告がある<sup>8)</sup>。VADの診断では、MRI、MRAが、血管腔(内腔不整、intimal flapなど)および血管壁(壁在血腫など)の両方の情報が得られるため有用とされ<sup>9)</sup>、これまでに3D-T1強調画像<sup>10)</sup>、3D-black blood T1強調画像<sup>9)</sup>、脂肪抑制T1強調画像<sup>11)</sup>、T2強調画像<sup>4)</sup>、脂肪抑制T2強調画像<sup>11)</sup>、プロトン密度強調画像<sup>4,10)</sup>、磁化率強調画像<sup>9)</sup>、BPAS<sup>6)</sup>などの報告があり、VADの可能性が積極的に疑われる場合は考慮してよいかもしれない。CTA、DSAは血管内腔の情報が主体で、加えて、CTAは造影剤を要し、DSAは侵襲的であるため、汎用性に劣るかもしれない。VADの早期変化を評価でき、なおかつ日常臨床で利用可能なプロトコールの確立が望まれる。

本症例では、頭痛出現から出血までの間で、いつ拡張病変をきたしたかは不明である。症状からは病態変化を示唆する手掛かりはなかった。今回の症例からは、破裂VADでは、当初の頭痛出現時には血管内腔や外形の変化を認めなくとも、のちに大きく形態変化して出血するものが存在するといえる。しかしながら、その頻度は少ないため、同様の頭痛・後頸部痛の症例に対し、一律に多数回の画像精査を行うのは、医療経済的にも現実的ではないだろう。今後のさらなる知見の蓄積が望まれる。



## 結語

頭痛発症時のCT, MRI, MRAで異常所見なく、7日後にSAHをきたしたVADの1例を報告した。稀な病態ではあるが、同様の可能性を念頭に置くことが日常診療上重要と思われた。

## 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. Mizutani T. Natural course of intracranial arterial dissections. *J Neurosurg.* 2011;114:1037-44.
2. Ono J, Higuchi Y, Tajima Y, et al. Outline of a Nationwide Study of Non-traumatic Intracranial Arterial Dissection in the Vertebrobasilar System: A Final Report. *Surg Cereb Stroke (Jpn)* 2015; 43:245-251,
3. Kobayashi N, Murayama Y, Yuki I, et al. Natural course of dissecting vertebrobasilar artery aneurysms without stroke. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2014;35:1371-5.
4. Kai Y, Nishi T, Watanabe M, et al. Strategy for treating unruptured vertebral artery dissecting aneurysms. *Neurosurgery.* 2011;69:1085-91
5. Shibahara T, Yasaka M, Wakugawa Y, et al. Improvement and Aggravation of Spontaneous Unruptured Vertebral Artery Dissection. *Cerebrovasc Dis Extra.* 2017;7:153-164.
6. Tsuji K, Watanabe A, Nakagawa N, et al. A case of unilateral vertebral artery dissection progressing in a short time period to bilateral vertebral artery dissection. *Surg Neurol Int.* 2019;10:126.
7. Kidani N, Sugi K, Hishikawa T, et al. De novo vertebral artery dissecting aneurysm after internal trapping of the contralateral vertebral artery. *Acta Neurochir (Wien).* 2017; 159:1329-1333.
8. Ro A, Kageyama N, Abe N, et al. Intracranial vertebral artery dissection resulting in fatal subarachnoid hemorrhage: clinical and

- histopathological investigations from a medicolegal perspective. *J Neurosurg.* 2009;110:948-54.
9. Sikkema T, Uyttenboogaart M, Eshghi O, et al. Intracranial artery dissection. *Eur J Neurol.* 2014;21:820-6
  10. Yun SY, Heo YJ, Jeong HW, et al. Spontaneous intracranial vertebral artery dissection with acute ischemic stroke: High-resolution magnetic resonance imaging findings. *Neuroradiol J.* 2018;31:262-269
  11. Shakir HJ, Davies JM, Shallwani H, et al. Carotid and Vertebral Dissection Imaging. *Curr Pain Headache Rep.* 2016;20:68

## 図表の説明

### Figure 1

頭痛発症時の画像

A-G: CT (A)、MRA (B-D)、fluid-attenuated inversion recovery (E)、MR cisternography (F)、basi-parallel anatomical scanning (G)では異常を認めなかった。矢印はのちの椎骨動脈解離部を示す。

### Figure 2

頭痛発症から7日後、椎骨動脈解離の破裂時の画像

A-B: CT でくも膜下出血を (A)、CTA で以前は認めなかった拡張部 (矢印) を右椎骨動脈に認めた (B)。

C: 術前 DSA で右椎骨動脈に intimal flap を伴う拡張部 (矢印) を認めた。

D: 拡張部および近位 VA をコイルで閉塞した。

E: 術後 DSA で病変部の完全閉塞を認めた。

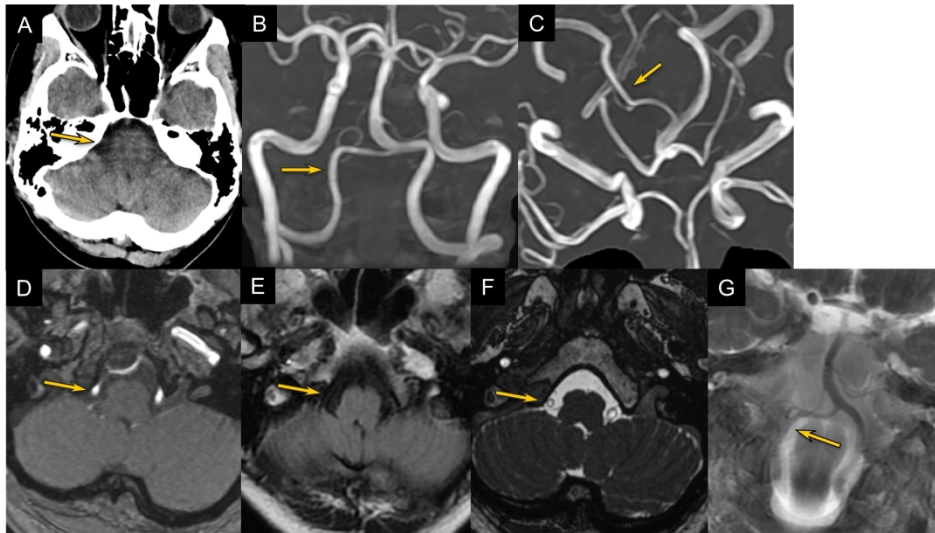


Figure 1

Figure 1

254x190mm (300 x 300 DPI)

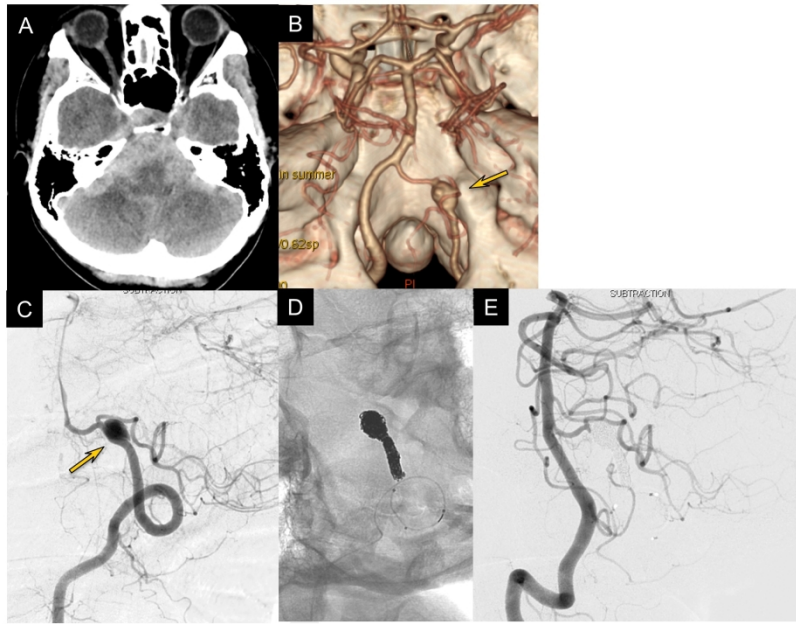


Figure 2

Figure 2

254x190mm (300 x 300 DPI)