症 例 報 告

頸部痛発作の翌日、クモ膜下出血をきたした椎骨動脈解離性動脈瘤の 1 例

小 山 新 弥 福 田 修 高 羽 通 康 亀 田 宏
 斎 藤 隆 景 桑 山 直 也* 遠 藤 俊 郎*

Vertebral Artery Dissection with Subarachnoid Hemorrhage after Neck Pain :
 A Case Report

by

Shinya Koyama, M.D., Osamu Fukuda, M.D., Michiyasu Takaba, M.D., Hiroshi Kameda, M.D.,
 Takakage Saitou, M.D., Naoya Kuwayama, M.D.* , and Shunro Endo, M.D.*

from

Department of Neurosurgery, Saito Memorial Hospital, and

*Department of Neurosurgery, Toyama Medical and Pharmaceutical University

A 59-year-old man presented with a sudden right-side neck pain. There were no obvious abnormalities detected on the first CT scan. About 35 hours after the first episode of neck pain, however, he was admitted after being diagnosed with subarachnoid hemorrhage. Cerebral angiography demonstrated characteristic pearl and string sign in the right vertebral artery involving the posterior inferior cerebellar artery. Serial angiography showed an increase in the size of the aneurysm. Proximal occlusion of the right vertebral artery was performed using detachable coils on the 23rd day after the admission. Postoperative course was uneventful and a reduction in the size of the aneurysm was noted during the follow-up period.

(Received October 2, 2001 ; accepted April 16, 2002)

Key words : dissecting aneurysm, vertebral artery, neck pain, headache, subarachnoid hemorrhage
Jpn J Neurosurg (Tokyo) 11 : 546-550, 2002

はじめに

症 例

近年、椎骨動脈解離性動脈瘤 (vertebral artery dissecting aneurysm ; VADA) の報告が増加している⁷⁾¹²⁾¹⁴⁾¹⁵⁾²²⁾²³⁾。脳虚血あるいはクモ膜下出血 (subarachnoid hemorrhage ; SAH) で発症する例がほとんどであるが、突発性、かつ持続性の頸部痛のみで発症し発見される例も少なからず報告されている¹⁾⁵⁾¹⁶⁾¹⁹⁾²⁰⁾。

今回、われわれは突発する頸部痛で発症、約 35 時間後に SAH をきたした椎骨動脈解離性動脈瘤の 1 例を経験した。診断、治療上の問題点につき、文献的考察を加え報告する。

患 者：59 歳，男性

主 訴：突発する右頸部痛

既往歴：高血圧，狭心症，尿管結石

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：1999 年 12 月 19 日午前 10 時ごろ，尿管結石による激しい腹部の仙痛発作と同時に，突然の右後頸部痛を呈し，これが持続し改善しないため，12 月 20 日午前当院外来受診した。疼痛の性質は「ズキンズキン」という拍動性で持続性のものであった。頭部 CT を施行したが，明らかな異常所見を認めなかったため (Fig. 1)，尿

斎藤記念病院脳神経外科／〒949-6602 南魚沼郡六日町欠の上 478-2〔連絡先：小山新弥〕

Address reprint requests to : Shinya Koyama, M.D., Department of Neurosurgery, Saito Memorial Hospital, 478-2 Kakenoue, Muikamachi, Minamiuonuma-gun, Niigata 949-6602, Japan

*富山医科薬科大学医学部脳神経外科

Fig. 1 The initial CT doesn't show an obvious high density area or low density area.

Fig. 2 CT scans obtained 35 hours after headache onset show a subarachnoid hemorrhage in the basal cistern and acute hydrocephalus.

路結石の発作に伴う頸部筋痛症と考え、鎮痛剤投与して帰宅させた。しかし、同日の午後9時、激しい頭痛発作のため、救急外来を受診した。CTにてSAHを認め(Fig. 2)、緊急入院となった。

入院時所見: 意識レベルはJapan Coma Scale I-1, 巣症状なし。CTでは橋前槽を中心とする急性水頭症を伴うSAHを認めた。緊急で施行した脳血管撮影では、後下小脳動脈 (posterior inferior cerebellar artery; PICA) 近位部の紡錘状拡張と右 vertebral artery (VA) の pearl and string sign を認めた (Fig. 3A)。

臨床経過: 右椎骨解離性動脈瘤と診断し、嚴重な血圧コントロールを行い経過観察とした。第2病日に傾眠傾向となり、CTで水頭症の拡大を呈したため、lumbar drainage を施行した。第8病日の脳血管撮影では、動脈瘤の大きさが増大した (Fig. 3B)。

本症例に対し、動脈瘤内圧の軽減や血流動態の変化を目的に、2000年1月12日(第23病日) interlocking detachable coil (IDC) による VA proximal occlusion を施

行することにした (Fig. 4A)。まず、balloon にて右椎骨動脈を17分間閉塞して、神経症状が出現しないのを確認し、動脈瘤より proximal の V4 に IDC-18 を計7本留置し閉塞した。治療後9日目の左椎骨動脈撮影では動脈瘤の大きさに著変は認めなかったが (Fig. 4B), 34日目では縮小し、また右 PICA の描出は良好であった (Fig. 4C)。2月18日に V-P shunt を施行し、明らかな神経学的合併症を認めず、4月2日(第115病日) 独歩にて退院した。1年半後の現在も、元気に当科外来通院している。

考 察

国内の頭蓋内解離性動脈瘤は、椎骨脳底動脈系に好発し、40~50歳代の男性に多い脳血管障害である。1998年の椎骨脳底動脈解離性動脈瘤の全国調査によると、発症様式は、SAH 58%、脳虚血 33%、解離痛と思われる頭痛、頸部痛のみの発症 7%と報告されている²³⁾。しかし、近年頭頸部痛のみで発症する報告例が増加しており、

A/B Fig. 3 Right vertebral angiogram taken on admission shows pearl and string sign with an involved posterior inferior cerebellar artery (A) and the following one obtained 8 days later shows a dilated segment slightly increasing in size (B).

A/B/C Fig. 4 Serial left vertebral angiograms after proximal occlusion showing a dilated segment slightly decreased in size

A : Angiogram on proximal coil occlusion

B : 9 days after the operation

C : 34 days after the operation

われわれが渉猟し得た症例を Table 1 にまとめた。11 例中 9 例が男性、発症年齢は 27～57 歳（平均 45 歳）で、左右差はなかった。11 例中 2 例に proximal occlusion を施行し、予後は全例 good recovery であった。

臨床診断上、突発性の頭頸部痛の症例では、椎骨脳底動脈解離性動脈瘤を鑑別診断の 1 つとして常に念頭に置き、CT で異常がなくても MRI や MRA を施行し、VA の偽腔内の fresh thrombus の有無や string sign, pearl and string sign などを確認し、場合によっては脳血管撮影を施行することが必要であると考えられた¹³⁾¹⁹⁾。Hosoya らは、MRI の壁内血栓陽性率を T1 強調画像で 32%、

spoiled gradient-recalled acquisition (SPGR) image で 87% と SPGR 法の有用性を報告している⁵⁾。

また、VADA の頭頸部痛に関し Silbert らは詳細にまとめている¹⁸⁾。VADA26 例中 18 例 (69%) に headache, 12 例 (46%) に neck pain を認め、前者の 33%, 後者の 42% が他の神経学的症状の数時間から数日前に出現しているという。その headache や neck pain は gradually に発症し、患側に多く、その性質は拍動性と持続性が約半々であった。このことは、いわゆる解離痛の前駆症状がありその後に出血、虚血、あるいはそのまま出血も虚血も起こらないという臨床的特徴を呈することを示

Table 1 Summary of cases presenting with only headache or neck pain

Author	Year	Age	Sex	Dissecting artery	Pain location	Treatment	Outcome
Ono, et al ¹⁶⁾	1995	38	M	Lt VA	Headache	Conservative	GR
"		51	M	Blt VA	Rt occipital	Proximal occlusion	GR
"		27	F	Rt VA-BA	Headache	Conservative	GR
Akiyama, et al ¹⁾	1996	43	M	Lt VA	Lt occipital, vertigo	Conservative	GR
"		44	M	Blt VA	Headache	Conservative	GR
"		39	F	Lt VA	Headache~Neck pain	Conservative	GR
"		48	M	Rt VA	Headache	Conservative	GR
Takahashi, et al ¹⁹⁾	2001	57	M	Rt VA	Rt occipital	Proximal occlusion	GR
"		57	M	Lt VA	Lt occipital~Neck	Conservative	GR
"		37	M	Rt VA	Rt occipital	Conservative	GR
"		50	M	Lt VA	Lt occipital~Neck	Conservative	GR

M : male F : female Lt : left VA : vertebral artery Blt : bilateral Rt : right GR : good recovery

Table 2 Summary of cases presenting with subarachnoid hemorrhage or ischemia following headache or neck pain

Authors	Age	Sex	Year	Dissecting artery	Pain location	SAH or Ischemia	Interval to stroke	Treatment	Outcome
Takida, et al ²¹⁾	33	M	1979	Blt VA	Headache, vertigo	SAH	4 months	Conservative	D
Yokoyama, et al ²⁴⁾	31	F	1984	BA	Occipital	Ischemia	3 hours	Conservative (anticoagulant)	D
Berger, et al ²⁾	43	M	1984	BA-bl PCA	Occipital	Ischemia	3 weeks	Coating	GR
"	27	F		Lt VA	Suboccipital~Neck	Ischemia	Several months	Conservative	MD
Hasue, et al ⁴⁾	41	F	1993	Lt VA	Headache	SAH	Several hours	Proximal occlusion	GR
"	32	M		Rt VA	Headache	Ischemia	Several hours	Proximal occlusion	GR
"	43	F		Rt VA	Occipital	Ischemia	Several hours	Conservative (anticoagulant)	GR
Takahashi, et al ²⁰⁾	32	M	1993	BA	Occipital	Ischemia	8 hours	Conservative	SD
Akiyama, et al ¹⁾	40	M	1996	Lt VA	Lt occipital~Neck	Ischemia	Several minutes	Conservative	GR
Ogane, et al ¹³⁾	32	F	2000	Blt VA-BA	Occipital	SAH	12 days	Conservative	D
Present case	59	M	2002	Rt VA	Rt occipital~Neck	SAH	35 hours	Proximal occlusion	GR

BA : basilar artery SAH : subarachnoid hemorrhage MD : moderate disability SD : severe disability
D : deathす¹⁾⁵⁾⁶⁾⁸⁾⁹⁾¹³⁾²⁴⁾

前駆する頭痛から SAH あるいは脳梗塞をきたした症例を Table 2 にまとめた。11 例中 6 例が男性で 27~59 歳 (平均 38 歳) と若年に、また比較的女性に多かった。左右差はないが、両側性あるいは脳底動脈系に多く、これらの症例は片側性より転帰が悪かった。頭痛から発症までの期間は数分から数カ月とさまざまであり、SAH 発症例は自験例も含めて 4 例中 2 例死亡しており、脳虚血発症例より mortality が高かった。

頭痛、頸部痛のみでの発症例の予後・治療については、一般的には非出血群を含み、自然経過は良好のことが多い¹⁾⁷⁾¹⁶⁾¹⁹⁾。しかし、本例のようにその後出血するのか、あるいは閉塞するのかは予測できず一定の見解はない。椎骨解離性動脈瘤の発生病理について種々の報告があ

り³⁾¹⁰⁾¹⁷⁾、水谷らは、血管の外周の拡大がないものは中膜、外膜の損傷が少なく、破裂しにくい。一方、血管外周の拡大をきたすものは、中膜、外膜の損傷が大きいため出血しやすいと推測している。ゆえに、MRI、MRA や angiography で動脈瘤の拡大の進行を認めた場合は、積極的な治療も考慮しなければならないと考えられる。

本例は、出血発症から 23 日と日数が経っているため、再出血の確率は低い¹¹⁾¹⁴⁾、経時的脳血管撮影において動脈瘤の拡大を認めたため、より低侵襲である proximal occlusion を行い、仮に瘤の縮小が得られない場合は trapping および血行再建術を計画していたが、結果的に瘤の大幅な縮小を観察し、治療のゴールと判断した。

脳動脈解離の真の病態・長期予後・最善の治療法などは、不明な点が多い。また、MRI や MRA の精度の向上

に伴い、今後、脳神経外科医は梗塞やクモ膜下出血に至る前の症例に遭遇する頻度が増加することが予想される。今後のさらなる症例の集積、追跡が必要である。

文 献

- 1) 秋山義典, 伊藤 毅, 熊井潤一郎, 岩室康司, 三宅英則, 西川方夫: 非出血症椎骨動脈解離性動脈瘤の経時的血管撮影による検討. 脳外 24: 443-449, 1996.
- 2) Berger SM, Wilson BC: Intracranial dissecting aneurysms of the posterior circulation. *J Neurosurg* 61: 882-894, 1984.
- 3) Endo S, Nishijima M, Nomura H, Takaku A, Okada E: A pathological study of intracranial posterior circulation dissecting aneurysms with subarachnoid hemorrhage: Report of three autopsied cases and review of the literature. *Neurosurgery* 33: 732-738, 1993.
- 4) 蓮江正道, 福田忠治, 中島 智, 福島 力, 原岡 襄, 伊東 洋: 解離性椎骨動脈瘤の治療. 脳卒中の外科 21: 361-367, 1993.
- 5) Hosoya T, Adachi M, Yamaguchi K, Haku T, Kayama T, Kato T: Clinical and neuroradiological features of intracranial vertebrobasilar artery dissection. *Stroke* 30: 1083-1090, 1999.
- 6) 稲垣 徹, 斎藤孝次, 平野 亮, 加藤孝顕, 入江伸介, 村上友宏: 虚血発症後 14 日目にクモ膜下出血を来した椎骨動脈解離性病変の 1 例. 脳外 28: 997-1002, 2000.
- 7) 片山容一, 加納恒男: 椎骨解離性動脈瘤の診断と治療. 新薬と治療 49: 35-27, 1999.
- 8) 河田幸波, 目黒俊成, 萬代真哉, 松久 卓, 守山英二, 櫻井 勝, 松本祐蔵: 脳幹梗塞にて発症, クモ膜下出血をきたした椎骨脳底動脈解離性動脈瘤の 1 例. 脳卒中の外科 22: 485-489, 1994.
- 9) Kitanaka C, Sasaki T, Eguchi T, Teraoka A, Nakane M, Hoya K: Intracranial vertebral artery dissections: Clinical, radiological features, and surgical considerations. *Neurosurgery* 34: 620-627, 1994.
- 10) 水谷 徹: 解離性脳動脈瘤の発生病理と臨床病態. *Jpn J Neurosurg (Tokyo)* 10: 41-46, 2001.
- 11) 内門久明, 広畑 優, 宮城尚久, 徳富孝志, 重森 稔, 安陪等思: 出血型椎骨脳底動脈系解離性動脈瘤—保存・晩期治療群からの自然経過と転帰. 脳卒中の外科 26: 340-346, 1998.
- 12) 中澤拓也, 横山正男, 松田昌之: 椎骨動脈解離性動脈瘤の治療. *The Mt. Fuji Workshop on CVD* 17: 32-35, 1999.
- 13) 尾金一民, 藤田聖一郎, 大熊洋揮, 鈴木重晴: 遅発性クモ膜下出血を生じた椎骨脳底動脈解離性動脈瘤の 1 例. 脳と神経 52: 827-831, 2000.
- 14) 小野純一, 山浦 晶: 頭蓋内椎骨脳底動脈の解離性動脈瘤の検討—50 例の治療と長期的転帰. *Jpn J Neurosurg (Tokyo)* 3: 128-134, 1994.
- 15) 小野純一, 山浦 晶, 久保田基夫, 平井伸治, 宮田昭宏: 破裂解離性脳動脈瘤の治療は解決されたか?—椎骨脳底動脈瘤系 42 例の検討から. 脳卒中の外科 35: 51-56, 1996.
- 16) 小野純一, 山浦 晶, 小林繁樹, 久保田基夫, 宮田昭宏: 頭蓋内椎骨脳底動脈の解離性動脈瘤非出血例の治療方針—脳血管撮影所見の経時変化および長期的転帰からの検討. 脳卒中の外科 23: 167-172, 1995.
- 17) Sasaki O, Ogawa H, Koike T, Koizumi T, Tanaka R: A clinicopathological study of dissecting aneurysms of the intracranial vertebral artery. *J Neurosurg* 75: 874-882, 1991.
- 18) Silbert P, Mokri B, Schievink W: Headache and neck pain in spontaneous internal carotid and vertebral artery dissections. *Neurology* 45: 1517-1522, 1995.
- 19) 高橋明弘, 石井伸明, 浅岡克之, 堀内成好, 黒田 敏, 宝金清博: 頭頸部痛のみで発症した頭蓋内椎骨動脈解離性動脈瘤の 4 例. 脳卒中の外科 29: 172-177, 2001.
- 20) 高橋立夫, 服部和良, 小林由充子, 井上繁雄, 今川健司, 浅井 昭, 桑山明夫: 椎骨脳底動脈瘤解離の 6 例. 脳卒中の外科 21: 153-160, 1993.
- 21) 滝田杏児, 白戸英雄, 赤坂敏子, 深沢 仁: 椎骨脳底動脈瘤解離性脳動脈瘤の 1 剖検例と文献的考察. 脳神経 31: 1211-1218, 1979.
- 22) 渡辺高志: 解離性脳動脈瘤. 脳外 28: 849-852, 2000.
- 23) 山浦 晶, 吉本高志, 橋本信夫, 小野純一: 非外傷性頭蓋内解離性動脈瘤の全国調査 (第 1 報, 第 2 報). 脳卒中の外科 26: 79-95, 1998.
- 24) 横山元晴, 栗田 勇, 山下三成, 植村五郎, 吉田泰二, 阿部 聡: 椎骨脳底動脈解離性動脈瘤の 1 剖検例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 24: 343-348, 1984.

要 旨

頸部痛発作の翌日、クモ膜下出血をきたした椎骨動脈解離性動脈瘤の 1 例

小山 新弥 福田 修 高羽 通康 亀田 宏
斎藤 隆景 桑山 直也 遠藤 俊郎

症例は、59 歳男性。前日に突発する右頸部痛を主訴に来院した。来院時 CT で明らかな異常所見を認めなかったため、帰宅させた。しかし、頸部痛発作から約 35 時間後クモ膜下出血を発症し、緊急入院となった。

脳血管撮影では、後下小脳動脈分岐部を巻き込んだ右椎骨動脈の pearl and string sign を認めた。経時的脳血管撮影で動脈瘤の大きさが増大したため、第 23 病日に coil による右椎骨動脈の proximal occlusion を施行した。第 57 病日、動脈瘤は著明に縮小し、明らかな神経症状はなく退院した。

脳外誌 11: 546-550, 2002