頸部痛を契機に診断に至った特発性総頸動脈解離の1例

竹下 尚志・吉田 遼司・劉 隣
高橋 望・平山 真敏・中山 秀樹

A case of idiopathic common carotid artery dissection diagnosed by examining the cause of neck pain

TAKESHITA Hisashi・YOSHIDA Ryoji・LIU Rin
TAKAHASHI Nozomu・HIRAYAMA Masatoshi・NAKAYAMA Hideki

Abstract: We will report a case of idiopathic common carotid artery dissection diagnosed by examining the cause of neck pain. The patient, a 49-year-old woman who presented with a chief complaint of pain on the left side of her neck visited our hospital. Ultrasonography of the neck revealed hypertrophy of the intima and tunica media, while computed tomography and magnetic resonance imaging revealed stenosis of the left common carotid artery. Based on examination by a neurologist, we decided to take a conservative approach with blood pressure management and neck movement limitations. As a result, the pain on the left side of the patient's neck disappeared, and neck ultrasound results indicated that hypertrophy of the intima and tunica media of the left common carotid artery had decreased. No aggravation of the condition has been noted during 12-months of follow-up.

Key words: common carotid artery dissection (総頸動脈解離), idiopathic (特発性), neck pain (頸部痛)

緒 言

頸部痛は、口腔外科医が日常臨床で遭遇する頻度の高い症状である。頸部痛を伴う代表的な疾患としては顎関節症、頸部リンパ節炎、顎下腺炎、舌咽神経痛などがあるが¹⁾、重篤な疾患である頸動脈解離の約40%に頸部痛を伴うとされる²⁾。

頭頸部の血管に生じる動脈解離は、頭蓋内椎骨動脈に多く³⁾、大動脈解離の波及病変として総頸動脈解離を生じることも比較的多い²⁾。しかしながら総頸動脈のみに解離を生じる特発性総頸動脈解離はまれであり、とくに邦人における発症頻度はきわめて低く^{2,3)}、本邦における特発性総頸動脈解離は、われわれが渉猟し得た限り3例しか報告されていない^{4~6)}。一方、総頸動脈解離を放置すると動脈瘤形成や破裂、脳虚血や脳梗塞をきたすこともあり、早期診

断・治療が重要である⁶⁾。

今回われわれは、頸部痛を主訴に当科を受診し、特発性総頸動脈解離の診断に至った1例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 49歳、女性。

主 訴: 左側頸部の疼痛。

初 診: 2017年2月。

現病歴: 2017年2月中旬から左側頸部の疼痛が出現し、近在耳鼻科で鎮痛薬・抗菌薬を処方されたが、症状の改善はみられなかった。その後、左側下顎臼歯部歯肉に疼痛が出現したため近在歯科医院を受診したが、異常所見は指摘されず、同歯科医院からの紹介で頸部痛について精査・加療目的に2017年2月下旬に当科を受診した。

既往歴: 高血圧症。イルベサルタンを内服中。頭頸部外傷の既往はなかった。

家族歴: 特記事項なし。

現 症:

全身所見: 体格は中等度で、栄養状態は良好であった。意識は清明で、血圧139/84mmHg、脈拍73回/分であった。

口腔外所見: 左側頸部、胸鎖乳突筋内側に持続する疼痛

熊本大学大学院生命科学研究部総合医薬科学部門感覚・運動
医学分野歯科口腔外科学講座
(主任: 中山秀樹教授)

Department of Oral & Maxillofacial Surgery, Sensory and
Motor Organ Sciences, Faculty of Life Sciences, Kumamoto
University (Chief: Prof. NAKAYAMA Hideki)

受付日: 2019年3月19日

採択日: 2019年10月29日

写真1 初診時パノラマX線写真
顎骨内に疼痛の原因となる明らかな異常所見は認めない。

写真2 頸部超音波検査写真
疼痛部位の左総頸動脈の血管壁（水色破線）は内・中膜が肥厚（黄矢印）し、内腔の狭窄を認める。

写真3 造影CT画像
A：水平断 B：3D Angiography
左総頸動脈に限局性拡張（矢印）を認め、内腔の狭小化（丸）を認める。

を認め、疼痛部位に触れると激痛を生じ、同部では左総頸動脈の拍動を触知した。頭痛、胸痛はなく、四肢麻痺や言語障害といった神経学的異常もなかった。また動脈解離を合併する結合組織疾患や皮膚・関節疾患の所見はみられなかった。

口腔内所見；受診時には左側下顎臼歯部の疼痛はなく、同部を含め口腔内に疼痛の原因となりうる歯科疾患は認めなかった。

画像所見：パノラマX線写真では、疼痛の原因となりうる異常所見は認めなかった（写真1）。

臨床検査所見：一般血液検査・生化学検査に加え、結合組織疾患の合併の可能性を念頭に置き、赤血球沈降速度、Fib、D-dimerの測定を行った。主な検査結果は白血球数が $7,400/\mu\text{L}$ 、CRPが 0.28mg/dL 、赤血球沈降速度が 52mm/h 、CKが 221U/L 、Fibが 364mg/dL 、D-dimerが $1.0\mu\text{g/mL}$ であった。その他明らかな異常値は認めなかった。

臨床診断：左頸動脈痛。

処置および経過：疼痛の原因となるような器質的病変の有無を確認するために頸部超音波検査を行った。その結果、左総頸動脈の中・内膜は肥厚しており、狭小化した真腔および血栓化した偽腔を認めた（写真2）。また径狭窄率は54%、面積狭窄率は81%であった。当院神経内科に緊急で対診したところ、造影CTと造影MR検査を行うよう指示を受け、両画像検査を行った。造影CTでは左総頸動脈に径11mm程度の限局性拡張があり、内腔の狭小化を認めた（写真3A, B）。また、造影MRでは左総頸動脈に限局した狭窄を認め（写真4A～C）、頭蓋内に急性期脳梗塞を疑うような所見は認めなかった。以上の所見より、特発性左総頸動脈解離の臨床診断に至り、当院神経内科にて頸部運動制限と血圧管理による保存的加療の方針となった。降圧薬は近在医院でアゼルニジピンからイルベサルタンに変更された直後であった。血圧コントロール目標値は拡張期血圧：

写真4 Time-of-flight Magnetic Resonance Angiography 画像
 A：Raw data
 B：最大値投影法（Maximum intensity projection：MIP）画像
 C：Black-blood 画像；血流が低信号として描出されている。
 左総頸動脈に局限した狭窄（矢印）を認める。

140mmHg 以下，収縮期血圧：70～80mmHg 前後と設定されたが，当院受診時にはほぼコントロール域にあったことから同薬剤の内服継続下で経過観察の方針となった。その後，定期的に行った頸部動脈超音波検査において，肥厚部

写真5 頸部血管超音波検査写真

A：初診2週後；内～中膜（矢印①），中～外膜（矢印②）の肥厚を認める。
 B：初診1か月後；内～中膜（矢印①）の肥厚の退縮を認める。
 C：初診6か月後；肥厚部（矢印）は縮小し，経時的な真腔の拡大を認める。

は縮小し，真腔が経時的に拡大していく所見を認めた（写真5A～C）。

初診から12か月経過した現在，頸部痛はほぼ消失し，臨床所見や画像所見上明らかな再解離は認めていない。

考 察

頭蓋外動脈の解離は、Jentzer⁷⁾により1954年に初めて報告された疾患である。その解離様式は動脈壁の内膜もしくは中膜が分裂し、内膜下、中膜下もしくはその付随する層の下部に血腫が形成されることにより発生する。一般的に40代の若年者に多く認められ、頸動脈系での発生頻度は年間10万人あたり2.6人と報告されている⁸⁾。頸部の動脈解離は内頸動脈に生じやすいが、総頸動脈に生じることとはほとんどなく⁹⁾、総頸動脈解離の発生頻度は頸部動脈解離の1%未満と比べてまれである。総頸動脈は中膜に豊富な弾性線維を保有する弾性動脈であるが、内頸動脈は中膜の平滑筋層が発達した筋性動脈であるため、これらの血管壁の構造の違いが発生頻度が異なる理由として考えられている^{2,10)}。すなわち、内頸動脈は総頸動脈に比して弾性が劣り、また内頸動脈は外弾性板の消失により血流の圧に対する抵抗性が低いことから、解離が生じやすい血管であると考えられている¹⁰⁾。本症例では総頸動脈以外の頸部動脈に解離は認めず、非常にまれな病態であったと考えられる。

動脈解離のリスクとなり得る因子について、高血圧、糖尿病、脂質代謝異常、喫煙、肥満といった一般的な血管病の危険因子は頸部動脈解離の発症とのあいだに相関はなく、遺伝的要素の関与が示唆されている¹¹⁾。しかし、血管解離の病態と治療法の開発後ろ向き研究班(SCADS-Japan)による実態調査(SCADS-I)¹²⁾では、特発性頭頸部脳血管解離症例の5割に高血圧を認め、また名古屋ら³⁾の報告でも4割に高血圧を認めている。本症例も併存疾患に高血圧症があり、病態形成に何らかの影響を及ぼした可能性は否定できないと思われる。よって、高血圧症を有し頸部に疼痛を認める患者の診察にあたっては、疼痛の原因として総頸動脈解離を念頭に置く必要があると考えられる。

総頸動脈解離は、原因によって外傷性、医原性、大動脈解離の波及、またこのいずれにも属さない特発性に分類される。総頸動脈解離の41%は大動脈解離の波及に起因しており、大部分を占めている²⁾。一方で、本邦における特発性総頸動脈解離の報告はきわめて少なく、われわれが渉猟し得た限り3例のみである^{4~6)}。この理由については、人種差の関与も考えられるが、詳細は明らかではない³⁾。頭頸部に生じる動脈解離の初期症状について、頸部の内頸動脈解離では頭痛・頸部痛や舌下神経麻痺、舌神経麻痺といった下部脳神経障害を認めることが多い³⁾。一方、総頸動脈解離に関する海外におけるレビューによると、初期症状として、大部分が片麻痺、失語、視野欠損などの神経学的症状を伴うとされている²⁾。神経学的症状に頭痛や頸部痛を合併する症例を約40%に認めるとされるが、頸部痛のみを初期症状とした症例はきわめて少ない²⁾。本邦で報告

された3例においても、2例は上肢の脱力や意識障害、片麻痺といった神経学的異常を認めたが、頸部痛のみを初期症状とした症例は1例のみであった。また、特発性総頸動脈解離の予後は比較的良好で、大部分は治療により症状の完全回復を認めるとされるが、神経障害が持続する症例が約33%、死亡に至る症例が約5%とされている²⁾。総頸動脈解離の多くは医科からの報告であり、歯科医師が総頸動脈解離に遭遇する可能性はきわめて低いと考えられるが、誤診や診断の遅れは患者に致命的な結果をもたらす可能性があるため、日常診療において頸部痛を訴える患者の診察・診断に従事する機会が多い口腔外科医にとって、同疾患の存在や病態を理解し、鑑別疾患の1つとして念頭に置くことは重要である。

診断方法については、血管造影や造影MR、造影CT、頸部超音波検査などの画像検査を行う必要がある^{3,9)}。なかでも頸部動脈超音波検査は利便性、病変描出能、迅速性、侵襲性の面から総頸動脈解離の診断においてきわめて有用である。総頸動脈解離の迅速な診断や時機を得た対応は神経学的予後を改善させるとの報告もあり²⁾、迅速な診断が重要である。頸部動脈超音波検査では、頸部動脈解離急性期にはdouble lumen, intimal flapなどの特徴的な所見を認めることがあるが、発症1週間後には陳旧性の血栓を形成するため等輝度病変として描出されると報告されている¹³⁾。本症例でも内膜・中膜間に血栓を形成しており、内・中膜が肥厚したように描出され、狭窄病変として認められたことから、当該病変は発症1週間以降の総頸動脈解離と考えられた。

本症例は、当初疼痛の原因が特定できず、左総頸動脈に疼痛がみられたことから左側の頸動脈痛(carotidynia)と診断した。頸動脈痛は、1927年にFay¹⁴⁾によって初めて報告された頸動脈部分の圧痛を生じる原因不明の症候群であり、超音波検査で患側の血管壁に限局性の壁肥厚を認めることが報告されている¹⁵⁾。頸動脈壁の限局性肥厚については、早期の高安動脈炎および動脈硬化病変であるプラーク等との鑑別を要するが、血流波形よりある程度判断することができる¹⁵⁾。また、他に頸部の動脈付近に疼痛を伴う代表的な疾患としては顎関節症、頸部リンパ節炎、顎下腺炎、舌咽神経痛、頸動脈瘤破裂・解離などがあるが、これらは超音波検査である程度の除外診断や鑑別が可能である¹⁵⁾。本症例は、超音波検査を行ったことが早期発見につながっており、頸部痛の原因疾患の特定に超音波検査は有用であると考えられる。また、結合組織疾患では結合組織の脆弱性が原因で、動脈解離や動脈瘤破裂を合併することがある¹⁶⁾。結合組織疾患では、一般的に赤血球沈降速度値の亢進、CRP上昇、フィブリン分解物(FDP-E, D-dimer)高値などを認めることから、本症例でもこれらの検査を行った。動脈解離

を認めた場合に結合組織疾患の合併がないか、身体所見や血液検査で確認することも重要である。

治療について、脳虚血発症例では抗血栓療法を考慮すべきであるが、そうでなければ厳密な血圧管理のみが行われることが多いとされる¹⁷⁾。また、神経症状や病変部の増悪を認めた場合には、血管内治療によるステント留置が有効とされている¹⁷⁾。予後は比較的良好で、約半数は後遺症を残さず寛解する可能性がある²⁾。しかし、動脈瘤形成や破裂、脳虚血や脳梗塞などをきたすこともあり、病態によっては早急な診断・治療が重要であると考えられている⁶⁾。本症例では明らかな虚血症状を認めず、神経症状や病変部増悪も認められなかったため、血圧管理および頸部の運動制限のみ行ったところ、良好な経過をたどった。本症例の精査・加療は早期から神経内科医の指示の下で行われたが、重篤な病態を見逃さないためにも、診断の初期段階から専門医との緊密な連携が重要であると考えられる。

特発性総頸動脈解離は経時的に画像所見が変化していくため¹⁾、頸部動脈超音波検査による継続的なフォローが重要と考えられている。本症例でも、頸部動脈超音波検査で内腔の変化の様子を明確に把握することができ、同検査にて経時的なフォローを行った。長期フォローを行った患者において、Pelkonen ら¹⁸⁾の報告では、画像上の再発、臨床症状の悪化を認めた症例はなく、Bogousslavsky ら¹⁹⁾の報告でも、6か月以降に画像上で再発を認めたものは4%で、臨床症状の悪化を認めた症例はなかったとされている。本症例では、動脈解離の発症後12か月間の経過観察を行っているが、画像上の再発や臨床症状の悪化は認めず経過は良好である。

結 語

われわれは頸部痛を契機に診断に至った特発性総頸動脈解離の1例を経験したので報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、多大な御協力をいただきました熊本大学大学院生命科学研究部脳神経科学分野特任教授 中島 誠先生に深謝いたします。

本論文の要旨は、第62回(公社)日本口腔外科学会総会・学術大会(2017年10月、京都市)にて発表した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引用文献

- 1) 白砂兼光, 古郷幹彦: 口腔外科学. 第3版, 医歯薬出版, 東京, 2010, 142-475頁.
- 2) Victor Z, Svetlana Z, et al: Common Carotid Artery Dissection: A Case Report and Review of the Literature. *J Stroke and Cerebrovascular Diseases* 21: 52-60, 2012.
- 3) 名古屋春満, 武田英孝, 他: 特発性頸部内頸動脈解離10症例の臨床的検討. *脳卒中* 33: 59-66, 2011.
- 4) Katsuhisa K, Svetlana Z, et al: Spontaneous Dissection in the Common Carotid Artery - Case Report -. *Neurol Med Chir* 35: 373-376, 1995.
- 5) 井上明宏, 福本真也, 他: 短期間で寛解した総頸動脈解離の1例. *Neuro Surg* 33: 81-85, 2005.
- 6) 渡辺大介, 橋本孝朗, 他: 特発性総頸動脈解離性動脈瘤にステント併用コイル塞栓術を施行した1例. *JNET* 8: 213-217, 2014.
- 7) Jentzer A: Dissecting aneurysm of the left internal carotid artery. *Angiology* 5: 232-234, 1954.
- 8) Schievink WI, Mokri B, et al: Internal carotid artery dissection in a community. Rochester, Minnesota, 1987-1992. *Stroke* 24: 1678-1680, 1993.
- 9) Schievink WI: Spontaneous dissection of the carotid and vertebral arteries. *N Engl J Med* 344: 898-906, 2001.
- 10) 増岡 徹, 林 央周, 他: 頭蓋内外内頸動脈の血管構造に関する検討. *脳卒中の外* 35: 30-33, 2017.
- 11) DeBette S, Metso T, et al: Association of vascular risk factors with cervical artery dissection and ischemic stroke in young adults. *Circulation* 123: 1573-1544, 2011.
- 12) Minematsu K, Matsuoka H, et al: Cervicocephalic arterial dissections in Japan: Analysis of 454 patients in the spontaneous cervicocephalic arterial dissections study I (SCADS-I). *Stroke* 39: 566, 2008. (Abstract)
- 13) 堤 由紀子: 頸動脈エコーマニュアル. 第1版, ベクトル・コア, 東京, 2003, 104-105頁.
- 14) Fay T: Atypical neuralgia. *Arch Neurol Psychiatry* 18: 309-315, 1927.
- 15) 松田美津子, 山寺幸雄: 超音波検査で経過観察し得た Carotidynia (頸動脈痛) の1例. *超音波検査技術* 42: 271-277, 2017.
- 16) 山田千翔, 松田岳人, 他: 緊急を要する遺伝性結合組織疾患の画像診断. *臨放* 63: 811-823, 2018.
- 17) 篠原幸人, 小川 彰, 他: 脳卒中治療ガイドライン 2009. 第1版, 協和企画, 東京, 2009, 244-246頁.
- 18) Pelkonen O, Tikkakoski T, et al: Extracranial internal carotid and vertebral artery dissections: angiographic spectrum, course and prognosis. *Neuroradiology* 45: 71-77, 2003.
- 19) Bogousslavsky J, Despland P, et al: Spontaneous Carotid Dissection With Acute Stroke. *Arch Neurol* 44: 137-140, 1987.