くも膜下出血術後7日目にたこつぼ型心筋障害を発症し 1年以上左室収縮障害が遷延した1例

上村 岳士¹⁾ 伊原 郁夫¹⁾ 福間 淳¹⁾ 川合 省三²⁾
杉本 圭司¹⁾ 黒田 雅人³⁾ 金子 彰²⁾

要旨：くも膜下出血の術後7日目にたこつぼ型心筋障害を発症し、その後1年以上左室収縮障害が遷延した症例を経験した。症例は67歳の女性で前交通動脈瘤の破裂によるくも膜下出血を発症し、同日動脈瘤クリッピング術を施行した。術後7日目に突然胸部不快感を訴え、急性心不全状態となった。心電図検査、経胸壁超音波検査、冠動脈造影の結果たこつぼ型心筋障害と診断した。心筋逸脱酵素が高値を示し過換気負荷試験が陽性のため、冠攣縮が原因の急性心筋梗塞を合併したと考えた。くも膜下出血は順調に回復したが、たこつぼ型心筋障害は左室壁運動・心機能障害は改善なく、1年後も同様の所見が継続した。たこつぼ型心筋障害にもかかわらず、左室壁運動・心機能障害が1年以上継続した理由として冠攣縮による急性心筋梗塞が合併したためと考えた。

Key words: subarachnoid hemorrhage, anterior communicating artery aneurysm, Takotsubo cardiomyopathy, coronary spastic angina

はじめに

たこつぼ型心筋障害は、くも膜下出血の発症時に合併することが知られており¹⁾、急性心筋梗塞と類似した臨床症状、心電図所見を呈する。しかし予後は比較的良好で、心機能は発症数週以内に改善することが特徴とされる²⁾。

今回前交通動脈瘤破裂で発症したくも膜下出血患者の経過中、たこつぼ型心筋障害を合併し、1年以上心機能障害が継続した症例を経験した。たこつぼ型心筋障害の発症と左室収縮障害の遷延に冠攣縮の関与が考えられたため、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：67歳、女性

主訴：突然の激しい頭痛

既往歴：高血圧を指摘されたが未治療

現病歴：2015年7月某日買い物中に突然の激しい頭

痛、嘔吐を認めた。店員が通報し当院へ救急搬送された。

入院時現症：身長155 cm、体重55 kg、血圧210/120 mmHg、脈拍110/分(整)、体温37.2℃。

神経学的所見：JCS II-10、GCS 12(E3V3M6)、項部硬直有、瞳孔不同なし。明らかな神経脱落症状は認めなかった[Hunt and Kosnik(H&K) grade 3]。

検査所見：血液生化学検査では明らかな異常を認めなかった。12誘導心電図は正常洞調律、V₄-V₅で軽度ST低下を認めた(Fig. 1A)。胸部X線写真は心胸郭比50%で肺野に異常は認めなかった。頭部CTでFisher group 3のくも膜下出血を認めた(Fig. 2A)。出血量は脳底槽、前大脳縦裂、左シルビウス裂に多く、CT上右シルビウス裂に出血は認めなかった。3D-CT angiographyでは前交通動脈にblebを伴った4 mmの嚢状動脈瘤、左内頸動脈と右中大脳動脈にそれぞれ3 mmの嚢状動脈瘤を認めた(Fig. 2B)。以上の所見から前交通動脈瘤破裂によるくも膜下出血と診断した。CTでの出血所見から左内頸動脈瘤からの出血も否定できないためこの部位も確認すべく同日、左pterional approachでクリッピング術を施行した。右中大脳動脈瘤については、後日手術加療を行う方針とした。

手術所見：定型通り開頭を行い、左シルビウス裂を開放、左内頸動脈を確保した後に、内頸動脈瘤を確認した。

¹⁾ さくら会病院脳神経外科

²⁾ 同 リハビリテーション科

³⁾ 同 神経内科

(2016年8月8日受付、2016年8月15日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10476

Fig. 1 A : 入院時の12誘導心電図, B : たこつば型心筋障害を発症した際の12誘導心電図, C : 過換気負荷試験時の心電図

A : II, III, aVF, V₄-V₆ で軽度 ST 低下を認める.

B : V₂-V₆ 誘導で ST 上昇と T 波の陰転化を認める.

C : 過換気負荷前と負荷後の心電図比較. V₄-V₅ 誘導で 0.1 mV の ST 上昇を認める.

Fig. 2 A : 来院時の頭部 CT, B : 来院時の 3D-CT angiography, C : クリッピング術後の頭部 CT, D : クリッピング術後の 3D-CT angiography

A : 脳底槽, 前大脳縦裂, 左シルビウス裂に広がるくも膜下出血を認める. 右シルビウス裂にはくも膜下出血を認めない.

B : 前交通動脈に bleb を有する 4 mm の囊状動脈瘤を認める. 右中大脳動脈, 左内頸動脈にはそれぞれ 3 mm の囊状動脈瘤を認める (それぞれ矢印).

C : 脳底槽, 前大脳縦裂, 左シルビウス裂に広がるくも膜下出血は良好に洗浄されている.

D : 前交通動脈の動脈瘤は complete clipping である.

A	C
B	D

Fig. 3 A : たこつぼ型心筋障害を発症した際の胸部 X 線写真, B : 同時期の胸部 CT
A : 座位にて撮影. 心拡大と著明な両側浸潤影と胸水貯留を認める.
B : 両側肺水腫, 著名な胸水貯留を認める.

A | B

が infundibular dilatation であった. 次に前交通動脈瘤を確認した. 周囲に血腫が多く出血源は前交通動脈瘤であることが確認でき, クリッピングを行った.

術後経過: 術翌日から簡単な会話は可能となり, 明らかな麻痺症状は認めなかった. 意識障害は改善し, 見当識障害も認められなかった. 脳血管攣縮の治療としては, 塩酸ファスジル 30 mg を 1 日 3 回静脈点滴で行った. さらに脳底槽ドレナージチューブから, ウロキナーゼ 6 万単位を間歇注入し残存血腫の洗浄を行った.

術後 4 日目に再度 3D-CT angiography を行い, クリッピング後の確認を行った. CT 上は, 水頭症は改善しくも膜下出血も良好に洗浄されていた. 手術に伴う脳梗塞などの合併症は認められなかった (Fig. 2C, D).

術後 5 日頃から尿量が減少したため, 腎血流量を確保するためドパミン・ドブタミン $2 \mu\text{g/kg/min}$ を使用し利尿を図った. 心不全症状は認めなかった.

術後 7 日目にリハビリテーションで端座位訓練中, 突然の胸部不快感を認めた. 12 誘導心電図は正常洞調律であったが, V_2 - V_6 誘導で ST 上昇と T 波の陰転化を認めた (Fig. 1B). 血液生化学検査では CK 2316 IU/L, CK-MB 101 IU/L, BNP 896 pg/ml, トロポニン T は陽性であった. 胸部 X 線写真 (Fig. 3A), 胸部 CT 所見 (Fig. 3B) では, 心拡大, 肺うっ血像と胸水の貯留を認めた. 経胸壁超音波検査で左室駆出率 34%, 左室心尖部の収縮低下と心基部の過収縮が見られた (Fig. 4A). 後日施行した心臓カテーテル検査では冠動脈造影で左右冠動脈に有意狭窄は認めなかった (Fig. 5A). 心機能が著名に低下しており, 冠攣縮検査であるアセチルコリン負荷試験は施行できなかった. 左室造影検査では, 心尖部の無収縮と心基部から中部の過収縮が認められた (Fig. 5B). 心臓超

Fig. 4 A : たこつぼ型心筋障害を発症した際の経胸壁超音波検査, B : 1 年後の経胸壁超音波検査

A : 左室駆出率 34% と著名に低下し, 左室心尖部の収縮低下と心基部の過収縮を認める.

B : 左室心尖部の収縮低下と心基部の過収縮は改善なく同様の所見を認める.

A
B

音波検査, 冠動脈造影所見から, たこつぼ型心筋障害に伴う心不全と診断した. 血液生化学検査では急性冠症候群を合併していると考えられ, 硝酸薬の外用を開始した. 乏尿・心不全に対して使用していたカテコラミン製剤はたこつぼ型心筋障害の原因とされるため中止した. 脳血管攣縮期であるが, 脱水に注意しながら利尿剤を投与した. 経過中症候性血管攣縮による神経症状の悪化は認めなかった. 発症 1 カ月後には 12 誘導心電図での心

Fig. 5 A : たこつぼ型心筋障害を発症した際の冠動脈造影, B : 左室造影検査
A 左 : 左冠動脈右前斜位, 右 : 右冠動脈左前斜位 左右冠動脈に有意狭窄は認めない.
B : 収縮期での心尖部の無収縮と心基部から中部の過収縮を認める.

A
B

電図変化はほぼ改善し、胸部X線検査では心拡大、胸水、うっ血像を認めなかった。心不全症状が改善したため、心臓リハビリテーションを開始した。冠攣縮の診断のため過換気負荷試験を行ったところV₄-V₅誘導で0.1 mVのST上昇を認めたため、陽性所見と判断した(Fig. 1C)。今回の心疾患発症には冠攣縮が関与していると考えられ、硝酸薬の外用薬は継続使用した。発症2カ月後に当院回復期病棟へ転棟し、発症6カ月後ADLが自立したためmodified Rankin Scale 2で自宅退院となった。たこつぼ型心筋障害に関しては、経胸壁超音波検査では左室駆出率低下(30%)、左室心尖部の収縮低下と心基部の過収縮は改善なく、1年後も同様の所見が継続した(Fig. 4B)。未破裂右中大脳動脈瘤については、外来でMRAでの経過観察とし、心機能の回復を待ち手術加療を行う方針とした。

考 察

たこつぼ型心筋障害は1990年日本で初めて報告され、①高齢女性に好発し、②急性心筋梗塞に類似した臨

床所見を有し、③心臓超音波検査・左心室造影で左室心尖部の無収縮と心基部の過収縮を示すが④冠動脈に有意な狭窄病変は認めない、⑤多くは予後良好で左心室壁運動障害・心機能は数日から数週間でほぼ正常化する、と定義されている²⁾。

2004年に発生した新潟中越地震直後に発生が多く報告されているように、精神的ストレスが発症に関与するとされる³⁾。

発症機序は特定されておらず、冠動脈攣縮⁴⁾、微小循環障害⁵⁾、カテコラミン心筋障害⁶⁾などが論じられているが結論は出ていない。

発症機序が明らかでないため治療は併発する心不全、不整脈などへの対症療法が主となるが⁷⁾、短期間で心機能は改善することが多く予後は良好とされる。

たこつぼ型心筋障害がくも膜下出血¹⁾、脳内出血⁸⁾、脳梗塞⁹⁾などの頭蓋内血管障害に合併したとの報告は散見される。多くは血管障害発症時に併発することが多い。今回の症例のように、くも膜下出血発症の1週間後に併発することはまれである。くも膜下出血に併発する

場合、発症時 H&K grade 4 以上の重症例に併発することが多く¹⁰⁾、発症時の身体的ストレスが内因性カテコラミンを過剰分泌させ、これによる冠攣縮¹¹⁾やカテコラミン心筋障害¹²⁾が、たこつぼ型心筋障害の発症に関与していると推測されている。

今回の症例は H&K grade 3 と重症例ではなかった。術翌日には意識障害は回復し、見当識も保たれていた。疾患に対する認識が、強い精神的ストレスとなり、たこつぼ型心筋障害の発症原因となった可能性が高いと考えた。

その他の要因として、たこつぼ型心筋障害の発症前に行ったカテコラミンの持続投与が考えられる。本症例では血中カテコラミン濃度の測定は施行しておらず、心筋が高濃度のカテコラミンに曝露されたことを他覚所見として示すことはできないが、前述のごとく、たこつぼ心筋障害にカテコラミンが関与している可能性を考慮するとカテコラミンの持続投与が誘因となった可能性も考えられる。これまでもカテコラミン投与によりたこつぼ型心筋障害を来した報告がなされており¹³⁾くも膜下出血等の血管障害患者にカテコラミンを持続投与する際には、本症の合併に注意すべきであると考えた。

本症例は 12 誘導心電図、経胸壁超音波検査、左室造影検査で特徴的な所見を認め、たこつぼ型心筋障害と診断した。たこつぼ型心筋障害では心筋逸脱酵素の上昇は半数以上で認めるがいずれも軽度～中等度上昇にとどまる¹⁴⁾。本症例では CK 2316 IU/l、CK-MB 101 IU/l と高値を示したため、たこつぼ型心筋障害だけでは説明できず、軽度の急性心筋梗塞が合併した可能性があると考えた。

冠動脈造影では冠動脈狭窄所見を認めず、過換気負荷試験で陽性所見を認めたため、冠攣縮が急性心筋梗塞の発症要因と考えた。また先に述べたように、たこつぼ型心筋障害の発症原因として冠攣縮の関与が推測されており、これまでも冠攣縮を契機として、たこつぼ型心筋障害を発症した報告も認められる¹⁵⁾。

以上から、本症例の心合併症発症時の病態には、冠攣縮が関与した可能性があると考えた。

現在 1 年の経過で壁運動障害が残存しており、たこつぼ型心筋障害の一般的な経過と異なるが、本症例のように長期にわたり壁運動障害が残存したたこつぼ型心筋障害の症例も報告されている¹⁶⁾。

当症例ではたこつぼ型心筋障害に冠攣縮による急性心筋梗塞を合併したと考えたと長期の壁運動障害は、冠攣縮による急性心筋梗塞が関与しているとも考えられた。

結 語

くも膜下出血に、冠攣縮が原因と思われるたこつぼ型心筋障害を合併した症例を経験した。たこつぼ型心筋障害にもかかわらず、左室壁運動・心機能障害が 1 年以上継続した理由は、冠攣縮による急性心筋梗塞の合併による障害と考えた。

著者は日本脳卒中学会への COI 自己申告を完了しており、本論文に関して、開示すべき COI はない。

参考文献

- 1) Lee VH, Connolly HM, Fulgham JR, et al: Tako-tsubo cardiomyopathy in aneurysmal subarachnoid hemorrhage: an underappreciated ventricular dysfunction. *J Neurosurg* 105: 264–270, 2006
- 2) 佐藤 光, 立石博信, 内田俊明ら: 多枝 spasm により特異な左室造影ツボ型を示した stunned myocardium. in 臨床からみた心筋細胞障害: 虚血から心不全まで. 児玉和久, 土師一夫, 堀 正二編. 東京, 科学評論社, 1990. pp 56–64
- 3) Watanabe H, Kodama M, Okura Y, et al: Impact of earthquakes on Takotsubo cardiomyopathy. *JAMA* 294: 305–307, 2005
- 4) Kurisu S, Sato H, Kawagoe T, et al: Tako-tsubo-like left ventricular dysfunction with ST-segment elevation: a novel cardiac syndrome mimicking acute myocardial infarction. *Am Heart J* 143: 448–455, 2002
- 5) Bybee KA, Prasad A, Barsness GW, et al: Clinical characteristics and thrombolysis in myocardial infarction frame counts in women with transient left ventricular apical ballooning syndrome. *Am J Cardiol* 94: 343–346, 2004
- 6) Wittstein IS, Thiemann DR, Lima JA, et al: Neurohumoral features of myocardial stunning due to sudden emotional stress. *N Engl J Med* 352: 539–548, 2005
- 7) 栗栖 智: たこつぼ心筋症の病態と治療: 臨床医の立場から. *心臓* 42: 451–457, 2010
- 8) Deininger MH, Radicke D, Buttler J, et al: Tako-tsubo cardiomyopathy: reversible heart failure with favorable outcome in patients with intracerebral hemorrhage. *J Neurosurg* 105: 465–467, 2006
- 9) Yoshimura S, Toyoda K, Ohara T, et al: Takotsubo cardiomyopathy in acute ischemic stroke. *Ann Neurol* 64: 547–554, 2008
- 10) Mayer SA, LiMandri G, Sherman D, et al: Electrocardiographic markers of abnormal left ventricular wall motion in acute subarachnoid hemorrhage. *J Neurosurg* 83: 889–896, 1995
- 11) Yuki K, Kodama Y, Onda J, et al: Coronary vasospasm following subarachnoid hemorrhage as a cause of stunned myocardium. Case report. *J Neurosurg* 75: 308–311, 1991
- 12) 増田 卓, 池田泰子, 盛 虹明ら: クモ膜下出血急性期における左室壁運動異常の成因と病態. *日救急医学会東誌* 5: 251–260, 1994
- 13) 佐伯幸子, 松瀬厚人, 中田裕子ら: エピネフリンの頻回投与後にたこつぼ心筋障害を合併した気管支喘息の 1 例. *日呼吸会誌* 44: 701–705, 2006
- 14) 土橋和文, 長谷 守: たこつぼ型心筋症の成因に症例から迫る. *J Cardiol* 5: 112–115, 2010

- 15) Inoue F, Takaoka M, Kumura H, et al: [So-called "ampulla" cardiomyopathy associated with coronary vasospasm compared with acute myocardial infarction showing similar abnormal left ventricular wall motion: two case reports]. J Cardiol 39: 29–38, 2002
- 16) Watanabe T, Iwai-Takano M, Satoh S, et al: Persistent left ventricular systolic dysfunction in a patient with ampulla cardiomyopathy: a case report. J Cardiol 47: 147–152, 2006

Abstract

Persistent left ventricular systolic dysfunction for at least 1 year with the onset of takotsubo cardiomyopathy 7 days after subarachnoid hemorrhage surgery: a case report

Takeshi Uemura, M.D., Ph.D.,¹⁾ Ikuo Ihara, M.D., Ph.D.,¹⁾ Atsushi Fukuma, M.D., Ph.D.,¹⁾
Syozou Kawai, M.D., Ph.D.,²⁾ Keiji Sugimoto, M.D.,¹⁾
Masato Kuroda, M.D., Ph.D.,³⁾ and Akira Kaneko, M.D., Ph.D.²⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Sakurakai Hospital

²⁾Department of Rehabilitation Medicine, Sakurakai Hospital

³⁾Department of Neurology, Sakurakai Hospital

We experienced a case with left ventricular systolic dysfunction persisting for at least 1 year after the onset of Takotsubo cardiomyopathy, which had manifested 7 days after surgery for subarachnoid hemorrhage. A 67-year-old woman, who had developed a subarachnoid hemorrhage due to a ruptured anterior communicating artery aneurysm, underwent aneurysm-clipping surgery on the day of the hemorrhage. Seven days post-operatively, she complained of sudden chest discomfort and developed acute heart failure. The patient was diagnosed with Takotsubo cardiomyopathy based on electrocardiography, transthoracic echocardiography, and coronary angiography, and was considered to concomitantly have experienced an acute myocardial infarction due to coronary spasm based on high levels of cardiac enzymes and a positive hyperventilation test. The subarachnoid hemorrhage resolved uneventfully, but the findings of Takotsubo cardiomyopathy remained unchanged for at least 1 year without any improvement of either the impaired left ventricular wall motion or cardiac function. The reason for impaired left ventricular wall motion and cardiac dysfunction persisting for at least 1 year in this patient with Takotsubo cardiomyopathy was considered to be the concomitant acute myocardial infarction due to coronary spasm.

Key words: subarachnoid hemorrhage, anterior communicating artery aneurysm, Takotsubo cardiomyopathy, coronary spastic angina

(Jpn J Stroke 39: 150–155, 2017)