◆ 症例報告 ◆

妊娠中期にクモ膜下出血で発症した、後大脳動脈末梢部解離の 1 例

齋藤 佑樹¹⁾ 秋元 治朗¹⁾ 橋本 亮¹⁾ 幾石 尚美²⁾

要旨：周産期頭蓋内出血は母体死亡原因の約 1 割とされるが、報告例は限定的であり、その病態・治療方針など不明な点が多い。症例は特記すべき既往歴、家族歴のない 30 歳代女性。第 2 子妊娠 5 カ月であり、突然の頭痛を訴え救急搬送された。頭部 CT にて Fisher grade 2 の SAH を認めたが、脳動脈瘤は同定し得ず、unknown SAH として保存的加療を行い、mRS 0 にて自宅退院した。第 2 子出産目的での再入院の際、後方視的画像検討を行ったところ、右後大脳動脈末梢部に解離性動脈瘤を疑う所見を認め、嚴重な血圧管理のもと帝王切開で児を娩出した。その後は経時的に瘤の形態的縮小を認め、自然治癒に至った。本病態の自然歴は不明であるが、神経所見の軽微な症例では保存的加療も有用と思われた。母体に生じるダイナミックな生体変化が周産期脳卒中の発症に関与することが推察され、その管理においては産婦人科医との連携が必須と思われた。

Key words: posterior cerebral artery dissection, pregnancy, subarachnoid hemorrhage

緒 言

脳動脈瘤解離性病態は、若年発症のクモ膜下出血 (subarachnoid hemorrhage: SAH) の一因として知られているが、その中でも後大脳動脈末梢解離性脳動脈瘤の頻度は約 1% と稀である¹⁾。また、妊娠中に頭蓋内出血を生じる頻度は 0.01~0.05% と極めて稀であるが、母体死亡原因の 5~12% ともされ、その病態は重篤である^{2,3)}。我々は、後大脳動脈末梢部の解離性脳動脈瘤破裂が原因と思われる SAH を発症した妊娠中期症例を経験したため、妊娠と脳動脈瘤解離性病態との関連性を中心に文献的報告を加え報告する。

症例呈示

患者：30 歳代、女性

主訴：突然の頭痛

既往歴：特記事項なし

現病歴：第 2 子妊娠 5 カ月の経産婦。第 1 子は当院にて正常満期産で分娩した健常児である。3 日前からの感

冒様症状で近医を受診中に突然激しい頭痛を訴えたため救急搬送となった。

来院時現症：血圧 113/80 mmHg、脈拍 67 回、SpO₂ 97% (room air) と安定。神経学的所見として、意識レベル Glasgow Coma Scale: E4V4M6 と軽度意識障害と項部硬直を認めた。血液生化学的検査および心電図には特記すべき異常所見を認めなかった。

入院時画像所見：頭部単純 CT にて Fisher grade 2 の SAH と診断した (Fig. 1A)。妊娠中期であり、X 線被曝量や造影剤使用量の観点から造影 CT の施行を控え、MR angiography にて出血源の検索を行ったが、明らかな脳動脈瘤を指摘できなかった (Fig. 1B, C)。微小な動脈瘤からの破裂の可能性を鑑み、腹部をプロテクターで被覆、必要最小限度量の造影剤を用いて脳血管撮影を施行した。右内頸動脈撮影にて重複後交通動脈分岐部の漏斗状拡張を認めたものの、明らかな脳動脈瘤は認めず、出血源を同定し得なかった (Fig. 1D, E)。

経過：SAH of unknown origin と判断し、突発的な血圧上昇を避けるべく、産婦人科医の助言のもとに、疼痛管理と精神的ストレスへの対応を行い、妊婦への投与禁忌に該当しないカルバゾクロムスルホン酸ナトリウムとトラネキサム酸の投与を行った。その後、第 10 病日に脳血管撮影を再検した。初回造影検査にて指摘した内頸動脈後交通動脈分岐の破格を中心に検索したものの、再び出血源の特定には至らず、modified Rankin Scale (mRS) 0

¹⁾ 総合病院厚生中央病院脳神経外科

²⁾ 総合病院厚生中央病院産婦人科

責任著者：〒153-0062 東京都目黒区三田 1 丁目 11-7

総合病院厚生中央病院脳神経外科 齋藤佑樹

E-mail: yuki2712@tokyo-med.ac.jp

(2021 年 3 月 19 日受付, 2021 年 6 月 3 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10913

Fig. 1 初診・入院時画像所見

- A：基底槽は不明瞭化し、びまん性に淡い血腫を認める (SAH Fisher grade 2).
 B, C：MRA. 正面像(B), 側面像(C). 明らかな動脈瘤は認めなかった.
 D, E：脳血管撮影(右内頸動脈撮影). 正面像(D), 側面像(E). 内頸動脈後交通動脈分岐部に、重複後交通動脈とその分岐部の漏斗状拡張を認めたが、MRA 同様に明らかな脳動脈瘤の所見は認められなかった.

にて自宅退院となった。退院後経過に特記すべき異常を認めず、血圧、脈拍などのバイタルサインの観察に加え、カルバゾクロムスルホン酸ナトリウムとトラネキサム酸の内服を継続した。産婦人科による定期健診経過も良好であり、SAH 発症から 5 カ月後に第 2 子出産目的に入院となった。入院後の産婦人科とのカンファレンスにおいて、脳血管撮影所見を再検討したところ、2 回目の脳血管撮影にて、右後大脳動脈末梢部 P3/P4 に解離性脳動脈瘤を疑う血管壁の狭窄とその後の膨隆 (peal and string sing と評価) があることを上級医が指摘し (Fig. 2A, D, G), 他部位に明らかな脳血管病変を認めないことから、初回 SAH の出血源の可能性が高いと考えられた。産婦人科医との協議を重ね、経陰分娩時のバイタルサイン変動のリスクを鑑み、本人および家族に十分なインフォームドコンセントを得た上で、硬膜外麻酔による除痛・血圧管理のもと、帝王切開で児を娩出した。産褥期にも臨床的な問題点は生じず、その後の母児の経過も良好であった。母児ともに退院し精神的にも落ち着いた出産 1 カ月後に、3 回目の脳血管撮影を施行した。右後大

脳動脈末梢部にみられた血管壁の狭窄および膨隆は形態上の改善を認め (Fig. 2B, E, H), 解離腔の血栓化による軽快傾向にある可能性が考えられたため、内服加療を続行した。さらにその 4 カ月後の脳血管撮影にて、血管形態の正常化を認め (Fig. 2C, F, I), 後大脳動脈解離は自然治癒したものと判断して内服加療も終了とした。内服終了後も外来経過観察を続けているが、母子ともに経過は良好である。本症例報告は患者本人からの同意を得て報告している。

考 察

脳動脈解離は内弾性板の欠損や破綻を主病態として、中膜へ血流が流入し偽腔を生じることで、SAH や分枝閉塞による脳虚血症状を呈する疾患である。非外傷性の脳動脈解離としては、椎骨動脈や脳底動脈、内頸動脈などが好発部位であり、末梢性動脈解離の報告は極めて稀である。頭蓋内脳動脈解離はやや男性の発生頻度が高く、出血群で女性の 1.3 倍、非出血群で 2.6 倍といわれ^{4,5)}、40~50 歳代の比較的若年層の脳卒中の原因とな

Fig. 2 脳血管撮影所見の経時的变化(右内頸動脈撮影)

A-C : 正面像. 初回入院第 10 病日, 右 P3/P4 に血管壁の狭窄と膨隆を認め(矢印), 解離性脳動脈瘤に伴う peal and string sign と考えられた(A). 第 2 子出産後, 右後大脳動脈末梢部の血管壁狭窄および膨隆の所見は改善傾向を示した(B). 発症後約 10 カ月, 後大脳動脈の解離所見は自然軽快傾向を示した(C).

D-F : 解離性動脈瘤部分の拡大図(正面像)

G-I : 側面像

※初回脳血管撮影: A, D, G

2 回目脳血管撮影: B, E, H

3 回目脳血管撮影: C, F, I

ることが知られている. その治療は出血発症か虚血発症かで二分され, SAH 等の出血発症では主に母血管閉塞による出血コントロールが試みられ, 一方で虚血発症では抗血小板療法の適応を検討されることが一般的である.

しかし, 極めて稀な頭蓋内末梢性脳動脈解離性病態の自然歴は未だ不明であり, その治療方針には議論が多い. さらに周産期に本病態を合併した症例報告は非常に限定的である. 過去には直達手術によるクリッピングやトラッピング, 血管内治療による母血管閉塞を施行した報告も見られるが⁶⁻¹⁰⁾, 近年では保存的加療での経過良好例が報告されており^{3, 11, 12)}, 椎骨動脈・脳底動脈など

の主幹血管の解離性病変に比較して, 比較的予後が良好である可能性が示唆されている¹³⁾. 妊娠に関連した解離性脳動脈瘤は, 本例を含む 5 例の報告例全てで後方循環系血管群の病変であり, 周産期の出血発症例が主であった(Table 1).

本症例の場合, 初回の血管撮影で動脈瘤などの明らかな出血源の特定に至らず, 保存的加療を選択したが, 過去の報告でも後方循環系血管群の末梢性解離においては, 比較的臨床症状が軽く, 保存的加療のみで完治し得たとするものが多い^{3, 11, 12, 14, 15)}. 従って, 出血発症であっても神経症状の軽微な後大脳動脈末梢部解離に限れ

Table 1 Clinical features of reported cases of dissecting aneurysm associated with pregnancy

Author	Age	Past medical history	Symptom	Location	Onset of stroke	SAH or ischemia	Management	Outcome
Van de Kelft, et al (1992) ¹¹⁾	31	none	nausea headache confusion cerebellar ataxia	BA	4 hrs. after labor	ischemia	conservative	mRS 1
Ikeda, et al (1999) ⁶⁾	37	toxemia of pregnancy	headache unconsciousness	Rt. SCA	1 day after delivery	SAH	clipping and wrapping	mRS 1
Inoue, et al (2007) ¹²⁾	30	NM	headache vomiting unconsciousness	Lt. PCA (P3/P4)	6 days post partum	SAH	conservative	mRS 0
Tanaka, et al (2013) ⁹⁾	38	NM	NM	Lt. AICA	third trimester of pregnancy	SAH	parent artery occlusion (endovascular)	mRS 1
Mehrotra, et al (2017) ³⁾	26	none	headache confusion	Rt. PCA (P2)	during labor	SAH	conservative	mRS 0
Aoyama, et al (2020) ¹⁰⁾	22	NM	NM	NM	third trimester of pregnancy	SAH	endovascular therapy	mRS 0
Manasewitsch, et al (2020) ¹⁵⁾	31	preeclampsia chorioamnionitis iron-deficiency anemia	vertigo nausea vomiting headache	VA	10 days post partum	ischemia	conservative	NM
Present case	38	none	headache	Rt. PCA (P3/P4)	second trimester of pregnancy	SAH	conservative	mRS 0

NM: not mentioned, BA: basilar artery, SCA: superior cerebellar artery, PCA: posterior cerebral artery, AICA: anterior inferior cerebellar artery, VA: vertebral artery, mRS: modified Rankin Scale

ば、必ずしも侵襲的な急性期の外科治療は必要ではなく、再出血の予防に対して、産婦人科医と連携した厳重な妊婦管理による保存的加療の方針も、母児へのリスクを鑑み、許容される可能性があると考えられる。

後大脳動脈の末梢性脳動脈解離に限れば、その発症頻度がむしろ女性に多いことは注目すべきであり、男性の約 3.1 倍であったと報告されている¹⁶⁾。さらに後方循環系血管群は、前方循環系血管群に比して自律神経系支配が脆弱であり、血圧の変動や血行動態の変化を受けやすいことが知られている¹⁷⁾。妊娠と末梢性脳動脈解離の発症メカニズムにおいては未だ不明な点が多いが、先天的な中膜欠損を基盤として、妊娠に伴う血圧、脈拍、体循環血液量の変動や、自律神経系の変化の関与^{12, 18, 19)}、ヒト絨毛性ゴナドトロピンやエストロゲン等の女性ホルモンの関与²⁰⁾などがあることを推察する報告がある。今後症例が蓄積され、本病態の解明が図られ、適切な治療指針が確立されることを期待したい。

結 語

周産期に母体に生じるダイナミックな生体変化は、周

産期脳卒中の発症メカニズムに関与することが推察される。妊娠に合併した末梢性脳動脈解離の治療に当たっては、保存的加療も有用である可能性があり、脳神経外科医と産婦人科医を中心とした密な連携が必要と思われた。

謝 辞

英文要旨は東京医科大学国際医療情報学分野の校正を受けた。ここに深謝する。

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

参考文献

- 1) Ferrante L, Acqui M, Trillò G, et al.: Aneurysms of the posterior cerebral artery: do they present specific characteristics? *Acta Neurochir (Wien)* 138: 840–852, 1996
- 2) Dias MS, Sekhar LN: Intracranial hemorrhage from aneurysms and arteriovenous malformations during pregnancy and the puerperium. *Neurosurgery* 27: 855–865; discussion 865–866, 1990
- 3) Mehrotra M, Mehrotra A, Nair A, et al.: Dissecting intracranial aneurysm in pregnancy: A rare association. *Asian J Neurosurg* 12: 127–130, 2017

- 4) Debette S, Compter A, Labeyrie MA, et al.: Epidemiology, pathophysiology, diagnosis, and management of intracranial artery dissection. *Lancet Neurol* 14: 640–654, 2015
- 5) Yamaura A, Ono J, Hirai S: Clinical picture of intracranial non-traumatic dissecting aneurysm. *Neuropathology* 20: 85–90, 2000
- 6) Ikeda K, Shoin K, Taguchi H, et al.: Postpartum dissecting aneurysm of the superior cerebellar artery -case report-. *Neuro Med Chir (Tokyo)* 39: 852–857, 1999
- 7) Okabe S, Kohno T, Nonogaki Y, et al.: An operative case of the P₃ segment aneurysm of the posterior cerebral artery treated with posterior subtemporal approach. *Surg Cereb Stroke (Jpn)* 25: 476–480, 1997
- 8) Sato Y, Abe T, Suzuki Y, et al.: Parent artery occlusion against dissecting aneurysm involving the proximal anterior inferior cerebellar artery: case report and literature review. *NMC Case Rep J* 7: 81–84, 2020
- 9) Tanaka T, Sadatoh A, Hayakawa M, et al.: Endovascular treatment of stroke during pregnancy: Measuring the radiation exposure dose of lower abdomen using the human body phantom. *JNET J Neuroendovasc Ther* 7: 243–251, 2013
- 10) Aoyama J, Inaji M, Ishikawa M et al.: Characteristics and treatment of stroke during pregnancy. *Neurosurg Emerg* 25: 217–223, 2020
- 11) Van de Kelft E, Kunnen J, Truyen L, et al.: Postpartum dissecting aneurysm of the basilar artery. *Stroke* 23: 114–116, 1992
- 12) Inoue T, Nishimura S, Hayashi N, et al.: Postpartum dissecting aneurysm of the posterior cerebral artery. *J Clin Neurosci* 14: 576–581, 2007
- 13) Bradac GB, Kaernbach A, Bolk-Weischedel D, et al.: Spontaneous dissecting aneurysm of cervical cerebral arteries. Report of six cases and review of the literature. *Neuroradiology* 21: 149–154, 1981
- 14) Sherman P, Oka M, Aldrich E, et al.: Isolated posterior cerebral artery dissection: report of three cases. *AJNR Am J Neuroradiol* 27: 648–652, 2006
- 15) Manasewitsch NT, Hanfy AA, Beutler BD, et al.: Postpartum vertebral artery dissection: case report and review of the literature. *Thromb J* 18: 30, 2020 <https://doi.org/10.1186/s12959-020-00243-w>
- 16) Selo-Ojeme DO, Marshman LA, Ikomi A, et al.: Aneurysmal subarachnoid haemorrhage in pregnancy. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 116: 131–143, 2004
- 17) Tsutsumi M, Akimoto J, Nakajima N, et al.: Two cases of posterior reversible encephalopathy syndrome resembling brainstem glioma. *Clin Neurol Neurosurg* 114: 1062–1065, 2012
- 18) Ogaki K, Fukue J, Noda K, et al.: Blurred vision with acute hypertension indicating hypertensive brainstem encephalopathy -case report-. *Neuro Med Chir (Tokyo)* 49: 625–630, 2009
- 19) Barrett JM, Van Hooydonk JE, Boehm FH: Pregnancy-related rupture of arterial aneurysms. *Obstet Gynecol Surv* 37: 557–566, 1982
- 20) Osman WM, Kadziolka K, Peirot L: Optional endovascular therapy of dissecting posterior cerebral artery aneurysm. *Interv Neurol* 6: 219–228, 2017

Abstract

A case of a pregnant woman with a subarachnoid hemorrhage caused by dissection of the distal region of the posterior cerebral artery

Yuki Saito, M.D.,¹⁾ Jiro Akimoto, M.D., Ph.D.,¹⁾ Ryo Hashimoto, M.D., Ph.D.,¹⁾ and Hisami Kiseki, M.D., Ph.D.²⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Kohsei Chuo General Hospital

²⁾Department of Obstetrics and Gynecology, Kohsei Chuo General Hospital

Pregnancy-associated intracranial hemorrhage is a serious clinical condition; however, the pathophysiology and effective management method remain unclear, and only a few cases have been reported to date. We here report a case of a pregnant woman in her thirties without any past medical history. She presented with a sudden severe headache, and a head CT scan displayed a subarachnoid hemorrhage. We performed two cerebral angiographies but could not detect any cerebral aneurysms. Conservative management was hence performed, and she was discharged without any neurological deficits. Five months after the subarachnoid hemorrhage, she was admitted to our hospital again for the delivery of her infant. We checked the previous cerebral angiography images again and detected a dissecting aneurysm at the distal region of the right posterior cerebral artery. Owing to this finding, we performed a caesarean section under careful blood pressure monitoring and delivered the infant without any complications. Subsequently, we followed the patient by performing cerebral angiography several times, and the dissecting aneurysm gradually became smaller and eventually disappeared. The dynamic physiological changes that occur to a woman's body during pregnancy can cause stroke, and it is hence important to cooperate with neurosurgeons and obstetricians for the management of this complicated and life-threatening condition.

Key words: posterior cerebral artery dissection, pregnancy, subarachnoid hemorrhage