

Vessel Wall Imaging が診断に有用であった くも膜下出血発症両側椎骨動脈解離の 1 例

前田拓真¹⁾ 佐藤徹^{1,2)} 原健司¹⁾ 濱野栄佳¹⁾ 橋村直樹¹⁾
角真佐武¹⁾ 池堂太一¹⁾ 西村真樹¹⁾ 高橋淳^{1,2)} 片岡大治¹⁾

1) 国立循環器病研究センター 脳神経外科

2) 近畿大学医学部 脳神経外科

要 旨

【目的】Vessel wall imaging (VWI) が診断に有用であった両側椎骨動脈解離の症例を報告する。
【症例】56 歳男性。頭痛・嘔吐を主訴に当院へ救急搬送され、CT でくも膜下出血を認めた。DSA では両側椎骨動脈に軽度の拡張を認めたが、MRA では intimal flap や double lumen sign を認めなかった。GdT1-SPACE による VWI を撮像すると、両側椎骨動脈の血管壁に全周性の造影効果を認め、右側では intimal flap が描出され、両側椎骨動脈解離と診断した。入院翌日の DSA で右側の形態変化を認め、出血源と判断、後下小脳動脈を温存した proximal occlusion を施行した。患者は入院 34 日目に後遺症なく自宅退院となった。【結論】解離性病変においても VWI は有用であり、DSA や MRA で診断が困難な場合、考慮すべきである。

Keywords 両側椎骨動脈解離、くも膜下出血、血管壁イメージング、近位側塞栓、血管内治療

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、再出血率が高く予後が不良となるため、早急な外科的介入による再出血予防が求められる¹⁾。しかし、両側 VAD の場合、出血側の診断や治療選択に難渋する場合も多い。SAH で発症した両側 VAD において、診断に vessel wall imaging (VWI) が有用であり、出血側の proximal occlusion により良好な転帰を得た 1 例を経験したので報告する。

症例提示

患者：56 歳、男性

既往歴：特記事項なし

生活歴：機会飲酒、喫煙歴なし

現病歴：来院 2 日前に頭痛を自覚し、改善しないため当院へ救急搬送となった。

入院時現症：Glasgow Coma Scale: E3V5M6、頭痛と嘔吐を認めたが、意思疎通は可能であり、運動麻痺や感覚障害などの神経学的所見を認めなかった。

頭部 CT：脳底槽を中心としたびまん性の高吸収域と脳室拡大を認めた (Fig. 1A)。World Federation of Neurological Surgeons (WFNS) grade II, modified Fisher grade 3 の SAH と診断した。

脳血管造影検査：右椎骨動脈 (vertebral artery: VA) 撮影では、左後下小脳動脈 (posterior inferior cerebral artery: PICA) 分岐部を含め軽度の拡張を認めたが、明らかな

連絡先：佐藤徹 近畿大学医学部 脳神経外科 (〒589-8511 大阪府大阪狭山市大野東 377 番 2 号)

E-mail: tetsus@med.kindai.ac.jp Tel: 073-366-0221

2022 年 8 月 19 日受付 2022 年 10 月 19 日採択

本論文は、クリエイティブ・コモンズ CC-BY-NC-ND (表示-営利利用不可-改変禁止) の条件下で利用できる。©2023 日本脳神経血管内治療学会



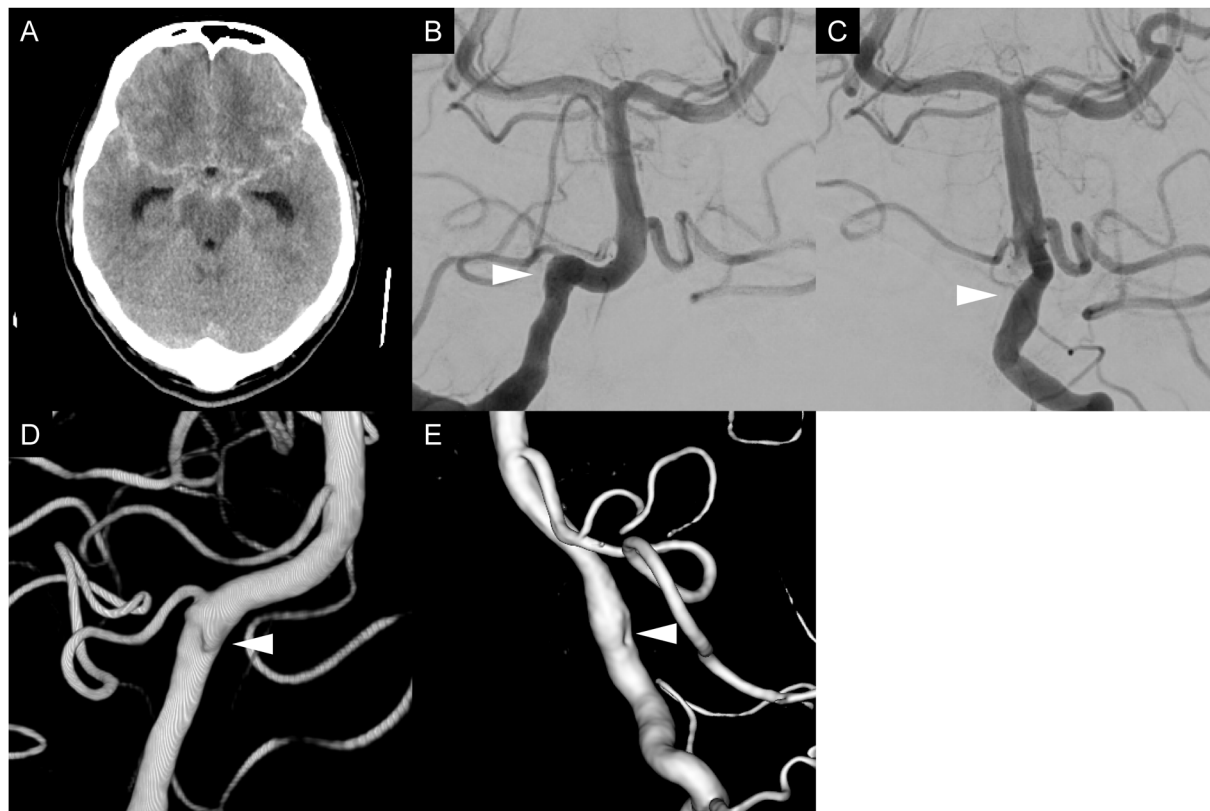


Fig. 1 Images on admission

(A) Head CT showing the diffuse subarachnoid hemorrhage.

(B–E) Conventional and 3D angiographies revealed irregular dilatation on V4 segment of bilateral vertebral artery (white arrowheads).

解離性動脈瘤は認めなかった。左 VA 撮影では、合流部直前にわずかな壁不整を認めた (Fig. 1B~E)。いずれも狭窄・閉塞所見は認めなかった。Allcock testにおいて両側の後交通動脈 (posterior communicating artery: PcomA) は描出されなかった。両側 VAD の可能性を考えたが、いずれも軽度の形態学的変化であり、解離性動脈瘤も認めなかったことから確定診断に至らず、出血側の判断も困難であった。来院時に発症から 24 時間以上経過しており、まずは保存的加療を行う方針とした。

入院後経過：入院翌日、診断目的で造影 MRI 検査を施行した。Time of flight (TOF) 法では、明らかな intimal flap や double lumen sign を認めなかったが、GdT1-SPACE による VWI では、両側 VA 拡張部の血管壁に造影効果を認め、右拡張部では造影された intimal flap が描出された (Fig. 2)。以上の所見から、両側 VAD (左病変は疑い) と診断した。また、脳底動脈血管壁は造影を受けず、解離は脳底動脈に及んでいな

いと判断した。VWI は Siemens 社製の 3T MRI 装置 (MAGNETOM) を使用し、撮像条件は repetition time (TR) 550 ms, echo time (TE) 26 ms, flip angle (FA) 120 deg, number of excitations (NEX) 2, field of view (FOV) 200×200 mm, matrix 320×320, slice thickness 0.6 mm, echo train length (ETL) 16 であった。入院翌日に施行したフォローアップの DSA において、右 VAD は前日と比較してさらに拡張しており、左 VAD は明らかな形態変化を認めなかった (Fig. 3A, B)。

治療方針：VWI と DSA の所見から右 VAD が出血源と判断し、再出血予防を目的として母血管閉塞術 (parent artery occlusion: PAO) を施行する方針とした。右 VAD は PICA-involved type であり、PICA を温存するため、分岐部直前までの proximal occlusion を行うこととした。左 VAD は明らかな形態変化を認めず、close follow-up の方針とした。

治療経過：入院翌日、DSA に引き続き、右 PICA 分岐部を温存した proximal occlusion を行った (Fig. 3C)。

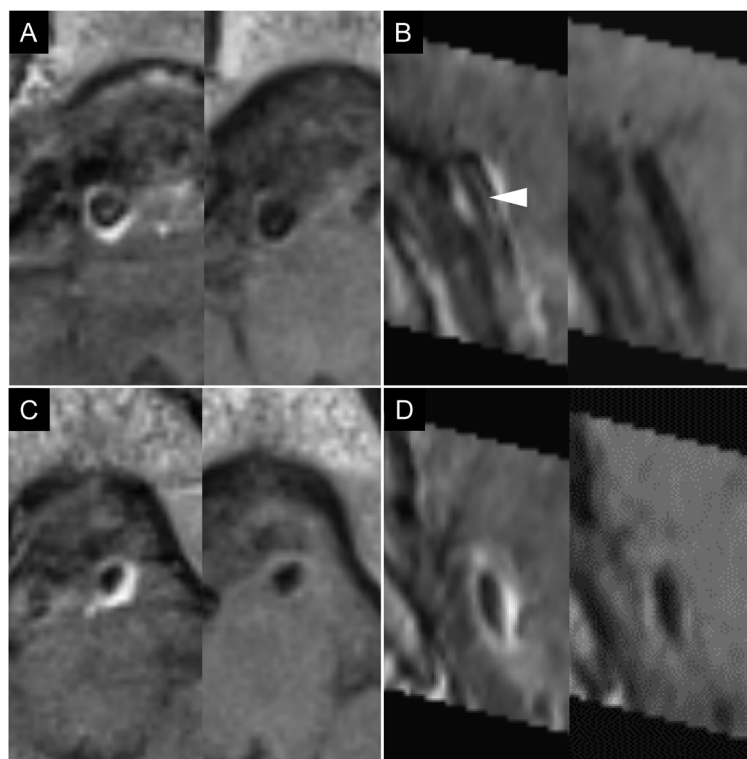


Fig. 2 MR vessel wall imaging (VWI) with and without contrast
(A, B) Axial and sagittal views of the right lesion. VWI demonstrated enhancement along the vessel wall and intimal flap was also observed (white arrowhead).
(C, D) Axial and sagittal views of the left lesion. VWI showed the wall enhancement, especially in the caudal.

ヘパリン 4,000 単位の全身投与を行った後、6Fr OPTIMO（東海メディカルプロダクツ、愛知）を右 VA の V2 portion 高位に留置した。対側からの flow を確認するため、左 VA 起始部には OK-1S（ガデリウス・メディカル、東京）を留置した。OPTIMO から先端を軽度屈曲させた Excelsior SL-10（Stryker, Kalamazoo, MI, USA）を Traxcess 14（テルモ、東京）を用いて病変部（PICA 分岐部近位）へ誘導した。合計 11 本のコイルを用いて、解離部中枢側の正常椎骨動脈を中心とした、一部瘤状拡張部にかかる形での proximal occlusion を行った。左 VA 撮影では union を経由して右 PICA が描出され、コイル周囲の血栓形成も認めず手技を終了した（Fig. 3D）。

術後経過：術翌日、鎮静を解除し抜管を行った。覚醒は良好であり、明らかな神経学的所見を認めなかった。脳血管攣縮予防のため、塩酸ファスジルの静脈投与を行った。入院 5 日目に MRI を施行、拡散強調画像（diffusion weighted image: DWI）では右 PICA 領域に線状高信号を認め、MRA で右 VA から右 PICA は描

出されず、血栓性閉塞とそれに伴う無症候性脳梗塞と判断した（Fig. 4A）。また、右 VA の再開通は認めなかったが、左 VA 病変部に狭窄所見を認め、虚血性合併症を予防するためヘパリンの持続投与（10,000 単位/日）を開始した（Fig. 4B）。入院 6 日目のフォローアップ MRA で、左 VA の狭窄は改善傾向であった（Fig. 4C）。同日 DSA を施行、右 VA の完全閉塞と左 VA の形態変化がないことを確認した（Fig. 4D）。また、MRA 所見と同様に、union を介した右 PICA への血流は消失しており、血栓性閉塞が疑われた。閉塞した右 PICA 領域の血流は、右 AICA からの側副血行により灌流されていた。入院 13 日目の VWI では、両側解離部の造影効果は減弱していた（Fig. 4E）。患者は水頭症による脳室拡大を認めたため、入院 29 日目に脳室腹腔シャント術を施行し、入院 34 日目に modified Rankin Scale スコア 1 で自宅退院となった。

考 察

本邦において、非外傷性頭蓋内動脈解離は脳卒中全

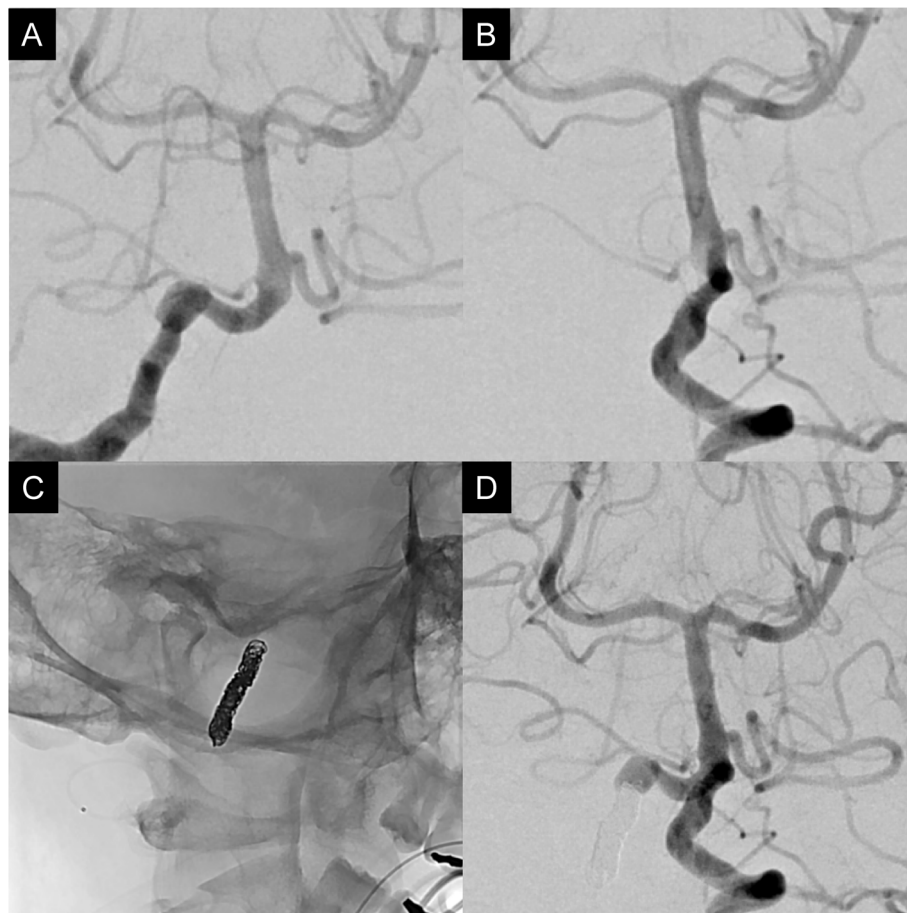


Fig. 3 Day 1 and postoperative angiography

(A, B) Conventional angiography on Day 1 showed worsening of the right lesion, while no morphological changes were observed in the contralateral side.

(C, D) Proximal occlusion of the right vertebral artery (VA) was performed, preserving the right posterior inferior cerebellar artery by the retrograde flow via contralateral VA.

体の0.7%を占め、性別は男性が76.1%、女性が23.9%と男性に多い²⁾。発症年齢は虚血型で40～49歳、出血型で50～59歳にピークがある²⁾。Yamauraらによると、非外傷性頭蓋内動脈解離322例のうち299例(93%)が椎骨脳底動脈系であった¹⁾。発症様式は、くも膜下出血58%、脳虚血33%、頭痛7%、偶発的発見2%であり¹⁾、かつては椎骨脳底動脈系で出血発症が多いと報告されていたが²⁾、最近では椎骨脳底動脈系であっても虚血例が多いとの報告もみられる³⁾。「椎骨脳底動脈系頭蓋内動脈解離の全国調査」⁴⁾では、VAD 610例を片側と両側に分類しており、両側病変は出血群の2.1%、虚血群の7.1%、頭痛群の10.1%で見られた。出血発症における両側病変は比較的稀である。

診断はDSA, MRI, MRAにおいてintimal flapまたはdouble lumen signが認められ、DSAでpearl and string

sign, string signのいずれかが認められると確実とされるが、本症例のように形態学的変化が軽度であり、診断に難渋する場合も少なからず存在する。血管外径の評価方法としてbasi-parallel anatomical scanning (BPAS)やT1-SPACE法も有用である⁵⁾。出血発症の両側VADでは、血腫の偏在や形態学的に出血側の判断を行うが、実際には困難な場合も多い⁶⁾。本症例においても血腫の偏在と出血側が異なっており、血腫局在での判断は必ずしも容易ではない。近年では、多発動脈瘤を有するSAHにおいて、破裂動脈瘤を同定するため造影MRIを用いたVWIが有用との報告も増えている⁷⁾。またSaitoらは、VADに対するVWIの有用性を報告しており、造影範囲が解離による有害性を反映するとしている⁸⁾。解離部が造影される機序については正確には解明されていないが、破裂前の炎症反応

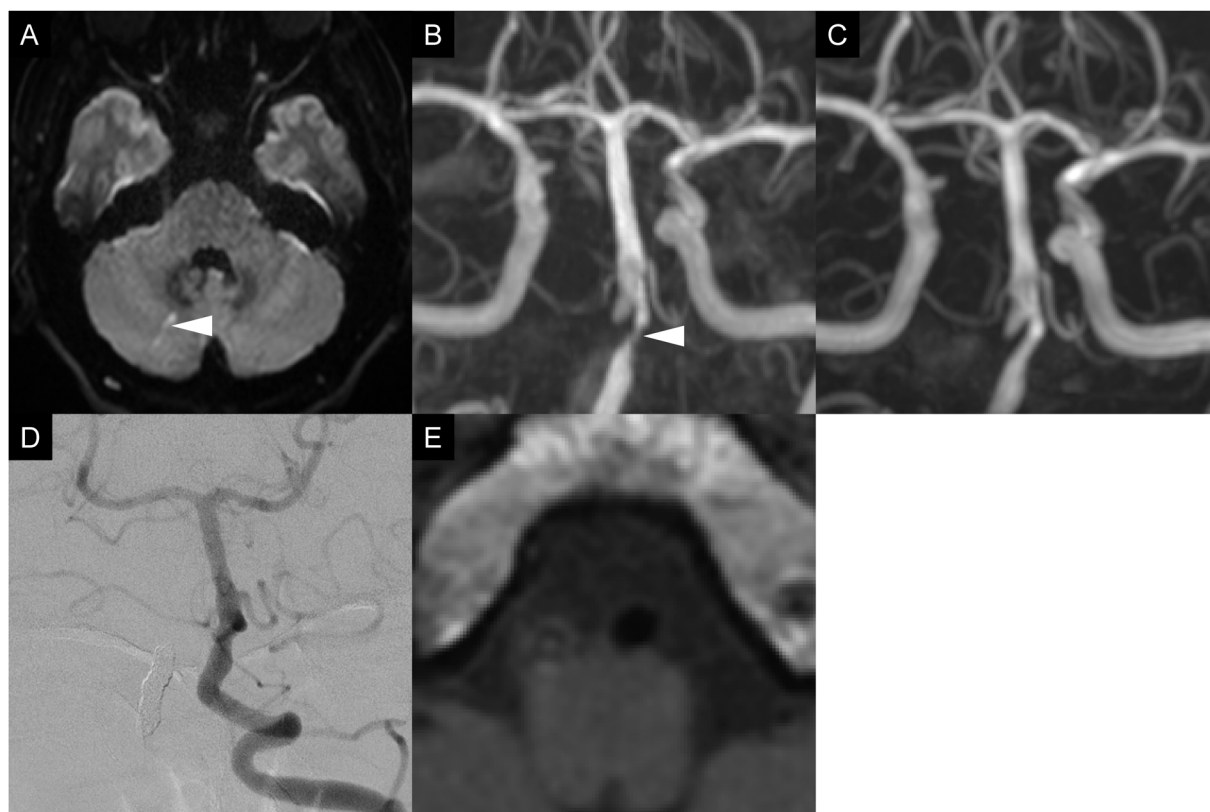


Fig. 4 Follow-up MRI and angiography

(A) Diffusion-weighted image on Day 5 showed acute infarction in the right posterior inferior cerebellar artery (PICA) territory (white arrowhead).

(B) MRA on Day 5 revealed the stenosis of left vertebral artery (white arrowhead).

(C) MRA on Day 6 demonstrated the resolution of the stenosis.

(D) Conventional angiography on Day 6 showed the obstruction of the right PICA.

(E) The enhancement along the vessel wall was decreased in both sides.

や解離による血管壁の物理的破壊および炎症の治癒過程によると説明される⁸⁾。本症例においては、GdT1-SPACEを用いたVWIを施行し、右病変は血管壁の造影効果とintimal flapの描出を認め、VADの確定診断が得られた。左病変については、血管壁の造影効果、DSAでの軽度拡張所見、さらに経時的な形態変化（狭窄所見）から、VAD疑いと診断した。また、DSAにおける経時的形態変化とVWIの所見から右病変を出血源と診断し、迅速な治療が可能であった。このように、本症例の診断においてはGdT1-SPACE (VWI) が非常に有用であった。脳血管障害の診断に広く使用されているTOFでは、partial volume effectや解像度の影響により、微細な病変の検出が困難な場合も多い⁹⁾。椎骨脳底動脈の血管厚を考慮すると、解離部の評価には高い分解能と、partial volume effectを最小限にするため高いスライス間分解能が必要である⁷⁾。今回使用

したT1-SPACE法では、フリップ角を調整し、任意のコントラストを得ることが可能で、高解像度の画像が得られる¹⁰⁾。また、turbo spin echo (TSE) 法で撮像されるため、磁化率アーチファクトが少なく、解離の診断にはより有用であると思われる¹¹⁾。

VADによるSAHは通常のaneurysmal SAHと比較して、発症から24時間以内の再出血が多く、再出血時には予後が不良となるため、早期の外科的介入による再出血予防が必要である³⁾。筆者らの施設では、Iiharaらの報告に基づき、PICA-involved typeのVADにおいてproximal occlusionを第一選択として行っている¹²⁾。PICA distalの解離部が残存するため再出血に対する懸念が残るが、解離のentryを閉鎖しており、flowも逆行性となることから、再増大の可能性は低いと報告されている¹³⁾。本邦のレジストリ研究であるJR-NET 1の結果でも、PICA-involved typeのVAD

に対する proximal occlusion での治療成績は、PICA を閉塞した群と比較して良好であった¹⁴⁾。以上のエビデンスをもとに、本症例では治療法として一部コイルが瘤状拡張部に入った形での proximal occlusion を選択した。入院 6 日目の DSA では、治療時に逆行性血流で温存した右 PICA が閉塞していたが、これはコイル遠位側に血栓形成を生じた可能性、PICA もしくは PICA 起始部より遠位部の VA にも解離が及んでいて閉塞した可能性などが考えられる。ただし、梗塞巣はわずかであり、AICA からの側副血行が PICA 閉塞時までに発達したことが示唆されるため、急性期における PICA 温存の妥当性はあったものと考えられる。

出血性 VAD に対して保存的治療を選択し、急性期の 2 週間を経過した大半の症例は、良好な予後が期待できるとされている^{12, 15)}。これは、壁在血腫の器質化により血管壁が修復されるためと考えられている¹⁵⁾。本症例においても、慢性期の VWI において解離部の造影効果が減弱・消失しており、この修復機序が働いたものと考えられる。したがって、急性期を過ぎ、形態学的な変化が消失した場合には、必ずしも外科的加療は必要ではないと考えられる。保存的加療を行った出血性 VAD の予後因子について、さらなる解析が期待される。非治療側の VA に生じる形態およびその変化を把握して、必要時に迅速な血管内治療を行うために、密な画像フォローアップが必要である。

結 語

VWI が診断に有用であったくも膜下出血発症両側 VAD の 1 例を報告した。DSA や MRA で診断が困難な症例に対して、VWI は有用な検査法であると考えられた。両側性 VAD においては、非治療側の形態変化にも十分な注意が必要である。

利益相反の開示

佐藤徹は、キヤノンメディカルシステムズ株式会社から研究資金の援助を受けている。

その他の著者に申告すべき利益相反はない。

References

- 1) Yamaura A, Yoshimoto T, Hashimoto N, et al. [Nationwide study of nontraumatic intracranial arterial dissection: clinical features and outcome]. *Surg Cereb Stroke* 1998; 26: 79–86. (in Japanese)
- 2) Kobayashi S. Stroke databank 2015. Tokyo, Nakayama Shoten, 2015.
- 3) Takagi M. [Cerebral arterial dissection]. *No To Shinkei* 2006; 58: 963–970. (in Japanese)
- 4) 小野純一, 樋口佳則, 田島洋佑, 他. 椎骨脳底動脈系頭蓋内動脈解離の全国調査(最終報告)第 1 報 —概要について—. *脳卒中の外* 2015; 43: 245–251.
- 5) Kanoto M, Hosoya T. Diagnosis of intracranial artery dissection. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2016; 56: 524–533.
- 6) 西憲幸, 山田與徳, 丸谷明子, 他. 保存的に治療した出血性椎骨動脈解離の 1 例. *脳卒中* 2018; 40: 280–284.
- 7) Mandell DM, Mossa-Basha M, Qiao Y, et al. Intracranial vessel wall MRI: Principles and expert consensus recommendations of the American Society of Neuroradiology. *AJNR Am J Neuroradiol* 2017; 38: 218–229.
- 8) Saito A, Fujimura M, Endo H, et al. Diagnostic value of contrast-enhanced magnetic resonance vessel wall imaging on the onset type of vertebral artery dissection. *Cerebrovasc Dis* 2019; 48: 124–131.
- 9) 戌亥章平, 山本麻子, 櫻井圭太. 主訴に沿う画像診断の目「血管壁を意識した脳血管障害の画像診断」. *臨神経* 2020; 60: 573–580.
- 10) Zhang Z, Fan Z, Carroll TJ, et al. Three-dimensional T2-weighted MRI of the human femoral arterial vessel wall at 3.0 Tesla. *Invest Radiol* 2009; 44: 619–626.
- 11) Sakurai K, Miura T, Sagisaka T, et al. Evaluation of luminal and vessel wall abnormalities in subacute and other stages of intracranial vertebrobasilar artery dissections using the volume isotropic turbo-spin-echo acquisition (VISTA) sequence: a preliminary study. *J Neuroradiol* 2013; 40: 19–28.
- 12) Iihara K, Sakai N, Murao K, et al. Dissecting aneurysms of the vertebral artery: a management strategy. *J Neurosurg* 2002; 97: 259–267.
- 13) Chinchure SD, Jaykrishnan V, Krishna Prasad BP. Endovascular strategies for management of intradural vertebral artery dissecting aneurysms. *Neurol India* 2018; 66: 83–89.
- 14) Satow T, Ishii D, Iihara K, et al. Endovascular treatment for ruptured vertebral artery dissecting aneurysms: Results from Japanese registry of neuroendovascular therapy (JR-NET) 1 and 2. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2014; 54: 98–106.
- 15) Yamaura A, Watanabe Y, Saeki N. Dissecting aneurysms of the intracranial vertebral artery. *J Neurosurg* 1990; 72: 183–188.

A Case of Bilateral Vertebral Artery Dissection with Subarachnoid Hemorrhage Diagnosed by Vessel Wall Imaging

Takuma MAEDA,¹⁾ Tetsu SATOW,^{1,2)} Takeshi HARA,¹⁾ Eika HAMANO,¹⁾ Naoki HASHIMURA,¹⁾ Masatake SUMI,¹⁾ Taichi IKEDO,¹⁾ Masaki NISHIMURA,¹⁾ Jun C. TAKAHASHI,^{1,2)} and Hiroharu KATAOKA¹⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, National Cerebral and Cardiovascular Center, Suita, Osaka, Japan

²⁾Department of Neurosurgery, Kindai University Faculty of Medicine, Osakasayama, Osaka, Japan

Objective: We report the case of bilateral vertebral artery dissection (VAD) with subarachnoid hemorrhage diagnosed by vessel wall imaging (VWI).

Case Presentation: A 56-year-old man had suffered from sudden onset of a mild headache 2 days before admission. He was diagnosed with subarachnoid hemorrhage. Conventional angiography showed irregular dilatation on V4 segment of bilateral vertebral artery, both of which were suspicious of arterial dissections. Identification of the ruptured side was difficult by the angiographic appearance as both dilatations were comparable, and MRA failed to detect either the intimal flap or double lumen sign. Fortunately, VWI by GdT1-SPACE demonstrated enhancement along the vessel wall in both lesions, and intimal flap was also observed in the right side, confirming the diagnosis of bilateral VAD. MRA on Day 1 showed the worsening of right VAD, while no morphological changes were observed in the contralateral side. Thus, the right VAD was considered the ruptured side, and we performed proximal occlusion of the right VA in endovascular, preserving the right posterior inferior cerebellar artery (PICA) by the retrograde flow via contralateral VA. MRA on Day 5 showed the stenosis of left VA; therefore, systemic administration of heparin was applied to prevent the thrombotic occlusion of left VA. Finally, the resolution of the stenosis was confirmed in Day 13, and he was discharged in Day 34 with modified Rankin Scale score of 1.

Conclusion: VWI appears useful for the diagnosis of VAD even in difficult cases such as bilateral lesions.

Keywords bilateral vertebral artery dissection, subarachnoid hemorrhage, vessel wall imaging, proximal occlusion, endovascular