

症例報告

不全型 arcuate foramen により形成されたと考えられた
部分血栓化溶解性椎骨動脈瘤の1症例多根総合病院 脳神経外科¹多根脳神経リハビリテーション病院 脳神経外科²たかせクリニック 脳神経外科³おくだ脳神経外科クリニック 脳神経外科⁴三木 義仁¹ 小川 竜介¹ 高瀬 卓志³ 西居 純平¹
奥田 泰章^{1,4} 住岡 真也¹ 柳川 伸子² 多根 一之¹

要 旨

頭痛を主訴に受診された33歳、女性。頭痛は片頭痛様で頭部MRIにて頭蓋内に明らかな異常は認めなかったが右椎骨動脈頭蓋外V3部に瘤形成を認めた。最大径15mm×10mmで全長35mmに渡り紡錘状に拡大し解離腔に部分血栓化を伴い、Gd造影にて動脈瘤壁は増強された。3DCTAでは瘤近位部に不全型arcuate foramenと思われる環椎の骨性突起を認め、頸部回旋によるDynamic DSAでは回旋により血行動態が変化し、不全型arcuate foramenによる機械的刺激により形成された部分血栓化溶解性椎骨動脈瘤と診断した。Arcuate foramenは約3～15%の頻度で見られる第一頸椎（環椎）のnormal variantであるが、椎骨動脈が貫通走行するためV3部椎骨動脈瘤の発症機序の1つとしてarcuate foramenにも注意する必要がある。

Key words : arcuate foramen ; 椎骨動脈 ; 解離性動脈瘤

はじめに

Arcuate foramenは約3～15%の頻度で見られる第一頸椎（環椎）のnormal variantであり、椎骨動脈が貫通走行することから稀にvertebrobasilar strokeの原因となる。今回不全型arcuate foramenによる機械的および牽引刺激にて形成されたと考えられた部分血栓化溶解性椎骨動脈瘤の1症例を経験したので報告する。

症 例

患者：33歳、女性。

主訴：頭痛。

既往歴：なし、生活習慣病の指摘なし。

生活歴：飲酒・喫煙なし、スポーツ歴なし。

家族歴：なし。

現病歴：約15年前からの頭痛症状を主訴に他院受診、頭部MRI撮影にて右椎骨動脈に異常を指摘されたため当科紹介受診された。

初診時現症：身長158cm、体重56kg、115/71mmHg、脈拍81回/分。意識は清明で神経学的に明らかな異常は認めなかった。頭痛は1回/月程度の閃輝暗点前兆を伴う両側側頭部を中心とした嘔気を伴う拍動性頭痛であり、頻度は低いものの片頭痛様であった。

血液検査：末梢血検査は白血球7300/ μ l、赤血球439万/ μ l、Hb13.7g/dl、Hct39.0%、血小板24.6万/ μ l、生化学検査は中性脂肪60mg/dl、総コレステロール162mg/dl、LDL-コレステロール78mg/dl、HDL-コレステロール72mg/dl、尿酸4.9mg/dl、血糖112mg/dl、HbA1c(NGSP)5.5%、凝固系検査



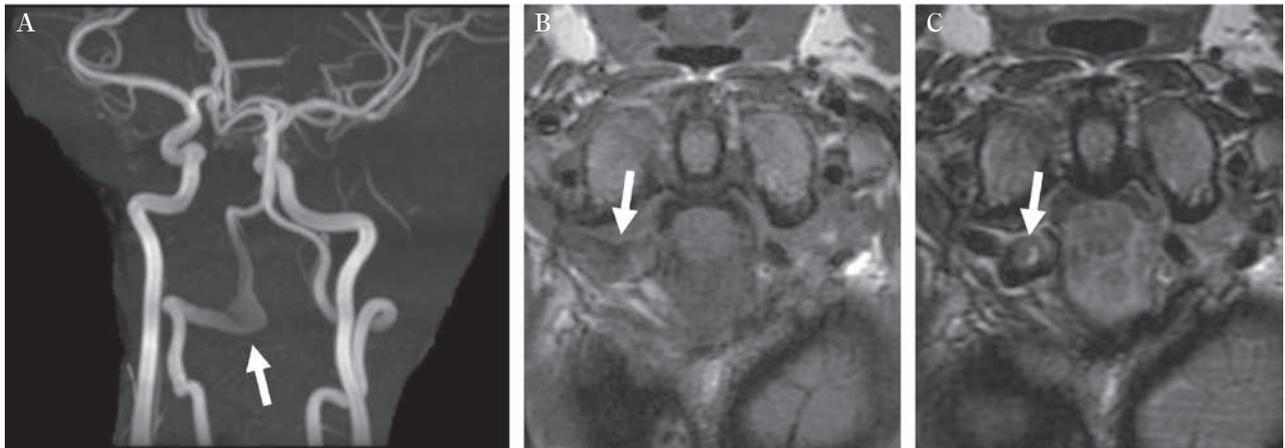


図1 頭部MRI, MRA

A : MRA. 右椎骨動脈頭蓋外 V3 portion に紡錘状拡張を認める (矢印).

B : T1 weighted image.

C : T2 weighted image.

瘤内には真腔内乱流あるいは壁血栓を疑う混合信号を認める (矢印). 頭蓋内に明らかな異常なし (図なし).

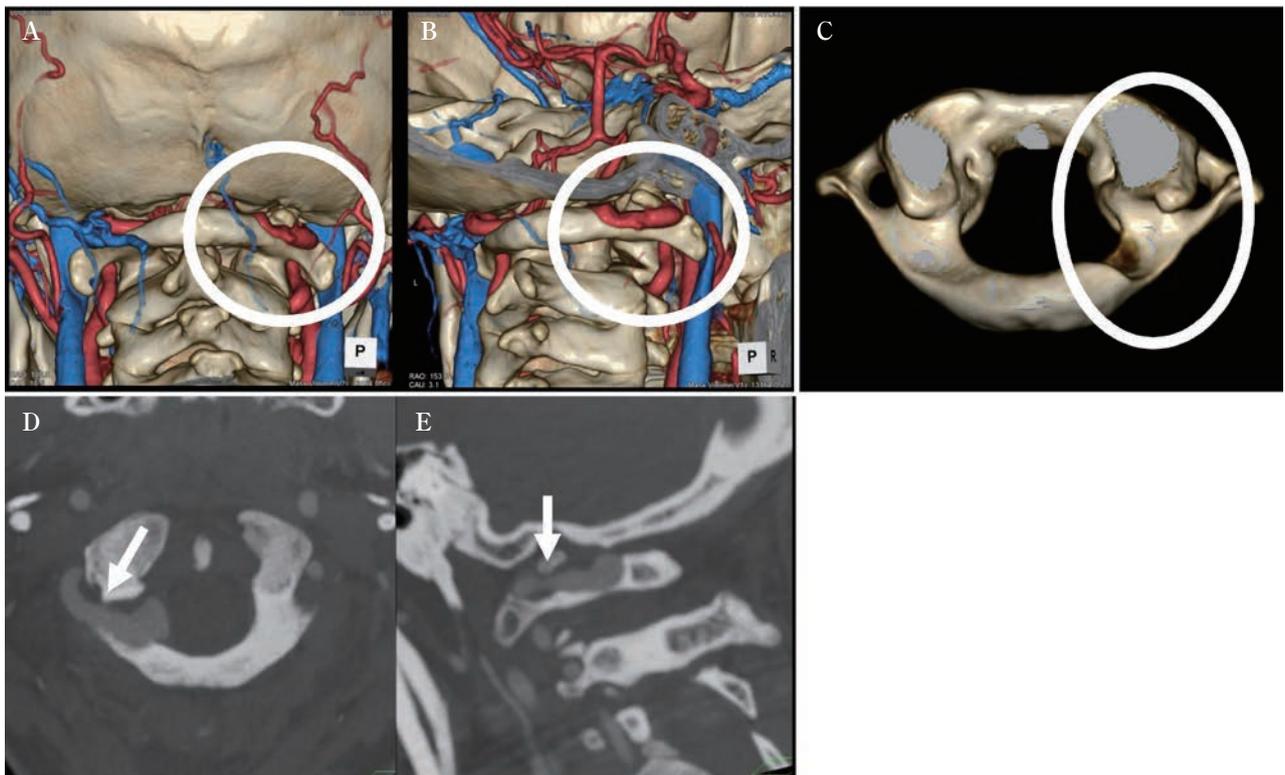


図2 頭頸部3DCTA

VR (volume rendering) image. A : 後方より観察. B : 右後方より観察. C : 環椎のみ上方より観察. 元画像. D : axial image. E : sagittal image. 環椎上関節突起後端が右側のみ後方へ突出し, 突起より遠位部にて右椎骨動脈の紡錘状拡張を認める. (電子版カラー掲載)

はPT 86.1%, PT (INR) 1.09, APTT 32.8秒, FDP 2.5 μ g/mlと全系統において全て正常範囲内であった.

神経放射線学的所見: 頭部 magnetic resonance angiography (MRA) では右椎骨動脈頭蓋外 V3 部が紡錘状に拡張し, 頭部 magnetic resonance image (MRI) では頭蓋内に明らかな異常は認めなかったが, 右椎骨動脈頭蓋外 V3 部の瘤内に真腔内乱流あるいは

壁部分血栓を疑う混合信号を認めた (図1). 頭頸部 3DCTA (three-dimensional computed tomographic angiography) では環椎の上関節突起後端が患側右側のみ後方へ突出し, 突起より遠位部にて右椎骨動脈の紡錘状拡張を認め, 骨性突起が瘤形成に関与していることが示唆された (図2). 頸椎 Xp 撮影では屈曲, 伸展にて頸椎不安定性は認めなかったが, 上関節突起

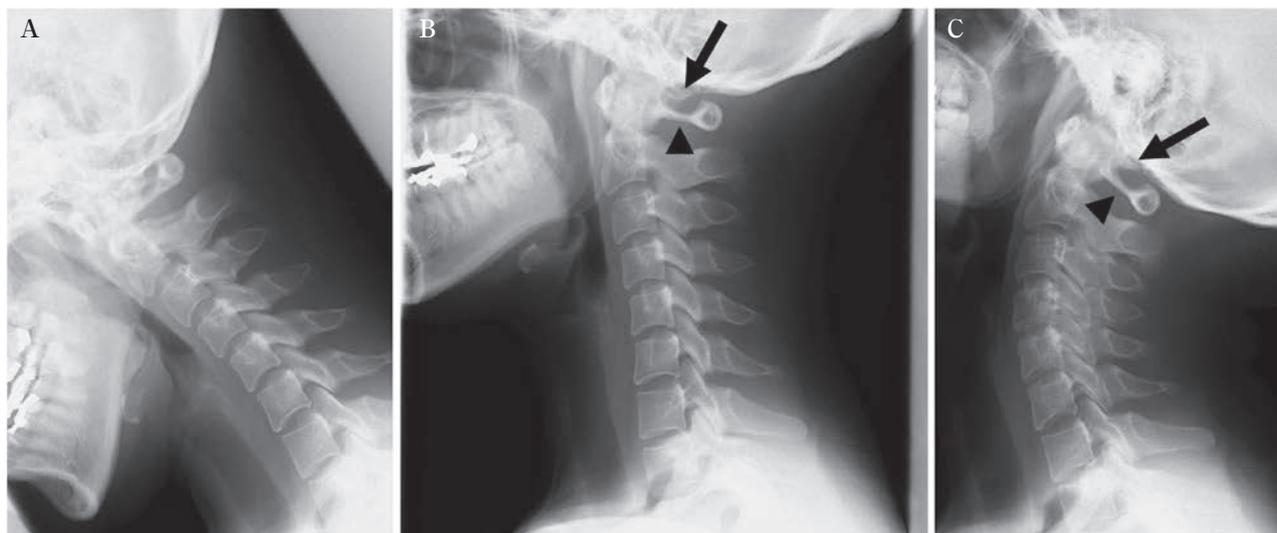


図3 頸椎 Xp

側面像 A：屈曲位. B：正中位. C：伸展位. 屈曲, 伸展にて頸椎不安定性は認めず, 上関節突起の後方突出 (矢印) および椎骨動脈瘤部位に一致し環椎後弓の陥凹を認める (矢頭).

の後方突出および椎骨動脈瘤部位に一致し環椎後弓の陥凹が観察された (図3). CT, Xp 所見より右側環椎上関節突起後端の後方突出は, 右片側の不全型 arcuate foramen と診断した. 入院にて行った頸部回旋による dynamic DSA (digital subtraction angiography) では右椎骨動脈頭蓋外 V3 部に最大径 15 mm×10 mm で全長 35 mm に渡る紡錘状動脈瘤を認め, 全方向で椎骨動脈狭窄所見は得られなかったが静脈相にて瘤内造影剤貯留 (pooling) を認め, 左方回旋で貯留時間は短縮し, 右方回旋では貯留時間の遅延を認めることから頸部回旋にて血行動態が変化し, 骨性突起の機械的圧迫が関与していることが推定された. Cone-beam CT では動脈瘤壁濃染像を認め, その一部は硬膜内 (V4) へ連続するのが観察され, 壁に血栓も明瞭に描出された (図4). 上記所見から不全型 arcuate foramen による機械的刺激により形成された部分血栓化解離性椎骨動脈瘤と診断した. 本患者の頭痛は偶発的に合併した片頭痛と考え, 動脈瘤は硬膜外に位置するため頭蓋外無症候性椎骨動脈瘤として保存的に経過観察とした. 動脈瘤壁が造影されることより今後増大リスクはあると考え, 今後の画像フォローアップで解離の硬膜内への進行が疑われた段階で治療介入を考慮する方針とした.

考 察

脳動脈解離は若年性脳卒中の原因として重要であり, 本邦では西洋諸国と比較して頭蓋内椎骨動脈解離が多く, 注目されている¹⁻⁴⁾.

頭蓋外椎骨動脈解離も頻度は低いものの認められ

る. 本邦での「後ろ向き研究による調査票を用いた脳動脈解離の実態調査: SCADS-I」は全国 156 施設 (167 診療所) の非外傷性脳動脈解離症例を 3 年間で 454 症例登録し解析が行われ, 解離部位は頭蓋内椎骨動脈が 288 例 (63.4%) で最も多く, 以下, 順に前大脳動脈が 34 例 (7.5%), 後下小脳動脈が 26 例 (5.7%), 頭蓋外椎骨動脈は 24 例 (5.3%) であった. 発症病型は虚血発症が 239 例 (52.6%), 出血発症が 126 例 (27.8%), 両方が 24 例 (5.3%), 頭痛発症, 無症候性を含むその他が 65 例 (14.3%) であった¹⁾. しかし治療に関しては全ての部位・病型に対しエビデンスのある有効なものは確立していない.

また頭蓋外頸部動脈解離は比較的若年者に多く, 頻度としては年間 10 万人あたり 3.5～4.5 人, 椎骨動脈に限っては 1～1.5 人であり, 脳梗塞の原因として約 2% を占めている⁵⁻⁷⁾. 頭蓋外椎骨動脈解離では頸部痛や後頭部痛のほか, 椎骨動脈系の一過性脳虚血発作, 脳梗塞などを併発することが多く, 初発症状として頸部痛, 後頭部痛が出現してから数時間～2 週間遅れて虚血症状が出現してくることが多い⁸⁻¹¹⁾. しかし頭蓋外椎骨動脈解離に対する治療に関しては, 虚血発症型では治療や予防のため抗凝固薬や抗血小板剤の内服や血管内治療やバイパスなどの治療例が数多く報告されているものの現時点で明確な方針は得られていないのが現状である.

頭蓋外椎骨動脈解離の発症機序としては外傷や整体などによる頸部の過伸展や線維筋性異形成症 (fibromuscular dysplasia: FMD) が報告されている⁸⁻¹⁴⁾ ほか, 稀な原因として椎骨の異常骨化病変¹⁵⁾

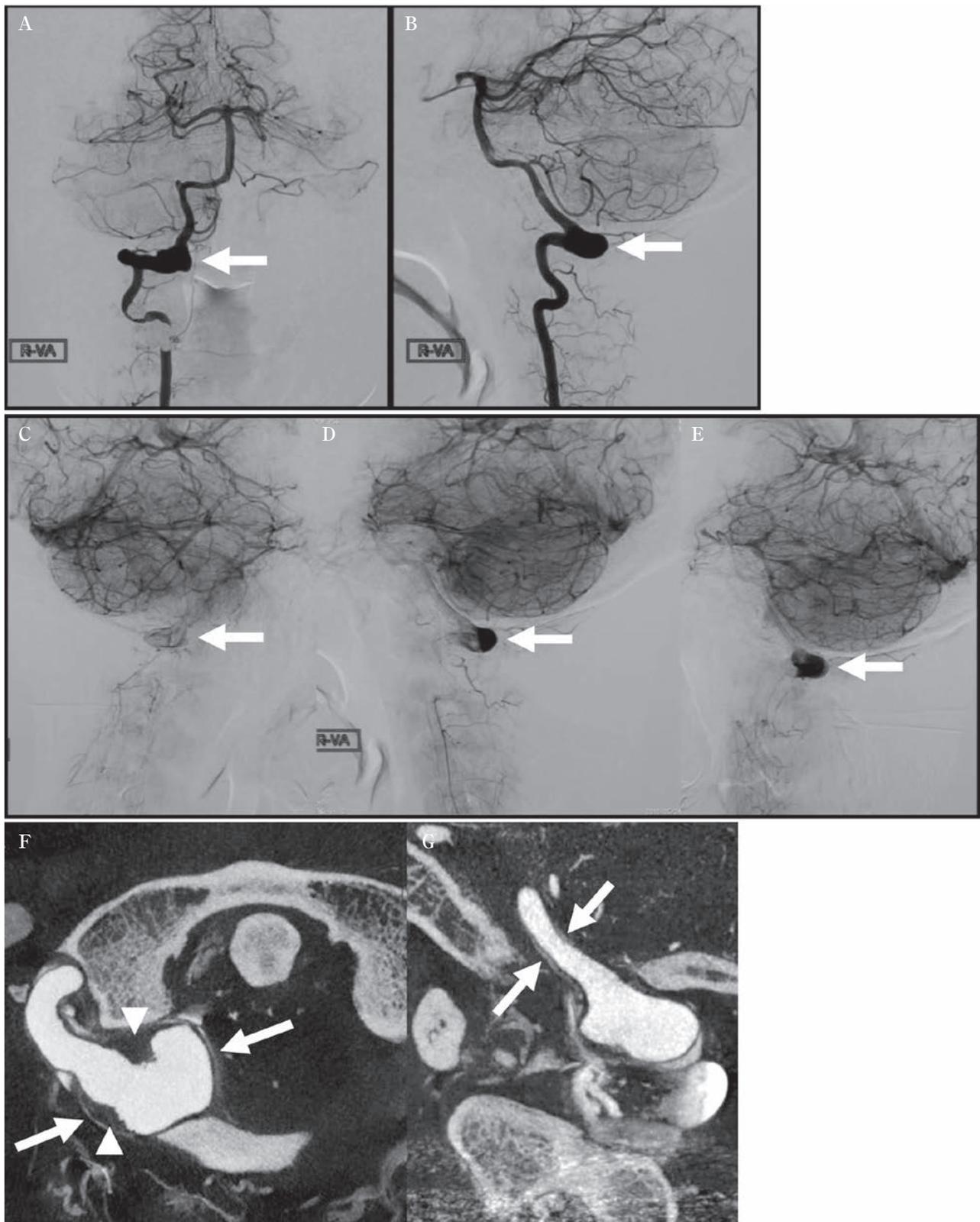


図4 Dynamic DSA (右椎骨動脈撮影)

動脈相 A：正面. B：側面. 右椎骨動脈頭蓋外 V3 部に最大径 15 mm × 10 mm, 全長 35 mm の紡錘状動脈瘤を認める (矢印). 全方向で椎骨動脈狭窄所見なし (画像なし). 静脈相側面 C：頸部左回旋. D：頸部正中位. E：頸部右回旋. 静脈相にて瘤内造影剤貯留 (pooling) を認める. 左方回旋で貯留時間は短縮, 右方回旋では貯留時間の遅延を認める (矢印). Cone-beam CT F：axial image. G：sagittal image. 動脈瘤壁濃染像を認め, その一部はわずかに硬膜内 (V4) へ連続するのが観察される (矢印). 壁在血栓が明瞭に描出される (矢頭).

や第一頸椎 (環椎) の normal variant である arcuate foramen による機械的刺激が発症機序となる報告がみ

られる¹⁶⁻¹⁸⁾.

Arcuate foramen (図5) は Kimmerle anomaly や

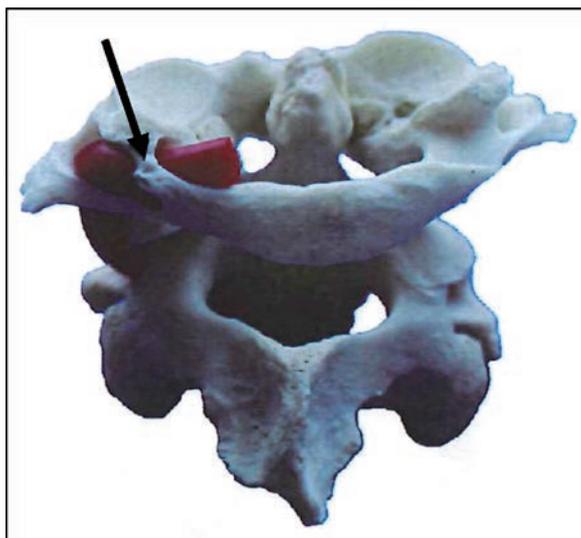


図5 Arcuate foramen (矢印)
文献¹⁸⁾より改変 (電子版カラー掲載)

Ponticulus posterior などとも称され、環椎後弓と大後頭孔後縁の間をつなぐ後環椎後頭膜 (posterior atlanto-occipital membrane) の骨化によって生じるとされ、外側端で椎骨動脈および第1頸神経を通す孔 (foramen) を形成する。発生頻度は約3～15%とされ、骨化の程度で1) no calcification, 2) calcification less than half of the vertebral artery groove, 3) calcification greater than half of the groove, 4) total calcification of the groove の4段階に分類される¹⁸⁾。Foramen の完全骨化は13.5%、部分骨化は5.2%にみられ、片側性、両側性があり明らかな性差は見られない。原猿類 (Strepsirhini) に多く見られ (98.9～100%)、高等化に従い頻度は下がり人類では約10%にみられると報告されている¹⁸⁾。Arcuate foramen を貫通する椎骨動脈は、foramen を有する反対側に頸部を回旋することにより伸長するとともに狭小化し、過度の牽引にて動脈解離や血栓形成を生じ椎骨脳底動脈系脳塞栓症を誘引するとされ¹⁶⁻¹⁸⁾ 注意を要する。

一方頭位変換により椎骨脳底動脈領域の循環不全をきたす病態として Bow hunter 症候群 (BHS) が知られている。BHS は別名 rotational vertebral artery syndrome とも呼ばれており、45度以上の頸部回旋に伴い椎骨動脈が機械的の圧迫を受けて椎骨脳底動脈領域に循環不全が生じ、めまいや意識障害、感覚障害、嚥下障害などの症状をきたす可逆性かつ一過性の稀な病態である¹⁹⁾。頭位回旋による椎骨動脈狭窄や閉塞は機械的に圧迫されやすい頸椎 C1/2 レベルが最多であるが、本症例は C1 レベルにて椎骨動脈に解離を生じたものの、Dynamic DSA では全方向で椎骨動脈狭窄所見は得られず椎骨脳底動脈領域の循環不全症状も

呈さなかったため BHS とは診断されなかった。

また脊椎外科領域でも arcuate foramen は注意すべき環椎 normal variant として認識されており、特に環椎外側塊スクリュー (atlas lateral mass screw) を用いた固定術において arcuate foramen 内を走行する椎骨動脈の損傷に注意を払うべきであると報告されている^{20, 21)}。

本症例は若年で明らかな生活習慣病歴やスポーツ歴、外傷歴などを有さず、頭痛を主訴に撮影した MRI にて右椎骨動脈頭蓋外 V3 部解離性動脈瘤が指摘されたが、arcuate foramen に関しては CTA を撮影することで関与を疑うに至ったため、診断確定、機序推定のためには CTA が重要な検査と思われた。原因不明の椎骨動脈解離や閉塞、後方循環の塞栓性病変を認めた際には今回のような病態も踏まえ、頸椎が十分入る範囲での CTA での評価、動態撮影による脳血管造影検査 (dynamic DSA) が診断確定のために重要と考えられた。

また本症例においては頭痛を主訴に来院され椎骨動脈解離が判明したが、頭痛は典型的な片頭痛症状であり動脈解離との関連は完全否定できないものの現時点では無関連と考えた。さらに頭蓋内に虚血性病変は認めず BHS も呈さないため、無症候性頭蓋外椎骨動脈解離として無加療で経過観察の方針とした。しかし動脈瘤壁が造影されることより増大リスクがあると推測され、解離の硬膜内進展が疑われた段階で治療介入を考慮する方針とし、今後も慎重に画像 follow を継続する予定である。

結 語

椎骨動脈瘤の発症機序として arcuate foramen の関与は比較的稀であるが、鑑別の1つとして注意する必要がある。診断の際、頸椎を含んだCTA, Dynamic DSA は有用と考えられ、治療戦略に関しては個々の症例に応じて個別に検討する必要がある。

文 献

- 1) 峰松一夫：脳動脈解離診療の手引き。循環器病研究委託費 18 公 -5 国立循環器病センター 内科脳血管部門編, 8-14, 2009
- 2) 高木 誠：椎骨脳底動脈解離. *Brain Med*, 17 (2) : 153-158, 2005
- 3) 高木 誠：本邦における椎骨脳底動脈解離の特徴とその診断・治療の現状と問題点. *脳と神経*, 54 (3) : 203-211, 2002
- 4) 高木 誠：脳動脈解離 (Cerebral artery dissection) の診断と治療の手引き, 若年性脳卒中診療の手引き. 矢坂正弘編, 循環器病研究委託費 12 指 -2 若年世代の脳卒中の診断, 治療, 予防戦略に関する全国多施設共同研究, 国立循環器病センター, 大阪, 85-90, 2003
- 5) Redekop GJ : Extracranial carotid and vertebral artery dissection : a review. *Can J Neurol Sci*, 35 (2) : 146-152, 2008
- 6) Mas JL, Boussier MG, Hasboun D, et al : Extracranial vertebral artery dissections : a review of 13 cases. *Stroke*, 18 (6) : 1037-1047, 1987
- 7) Touzé E, Randoux B, Méary E, et al : Aneurysmal forms of cervical artery dissection : associated factors and outcome. *Stroke*, 32 (2) : 418-423, 2001
- 8) Dzierwas R, Konrad C, Drager B, et al : Cervical artery dissection-clinical features, risk factors, therapy and outcome in 126 patients. *J Neurol*, 250 (10) : 1179-1184, 2003
- 9) 石川朗宏, 金沢泰久, 日笠親績, 他：頭蓋外椎骨動脈解離の1例. *Neurol Surg*, 22 (11) : 1077-1080, 1994
- 10) Biller J, Sacco RL, Albuquerque FC, et al : Cervical arterial dissections and association with cervical manipulative therapy. *Stroke*, 45 (10) : 3155-3174, 2014
- 11) 上村春奈, 黒田 敏, 牛越 聡, 他：頸髄神経根症状で発症した頭蓋外椎骨動脈解離の1例. *Neurol Surg*, 32 (4) : 361-365, 2004
- 12) 濱口浩敏, 今西孝充, 高坂仁美, 他：右上肢の筋力低下で発症した特発性椎骨動脈解離の1例. *脈管学*, 52 (March) : 137-140, 2012
- 13) Sakaguchi M, Kitagawa K, Hougaku H, et al : Mechanical compression of the extracranial vertebral artery during neck rotation. *Neurology*, 61 (6) : 845-847, 2003
- 14) Crum B, Mokri B, Fulgham J : Spinal manifestations of vertebral artery dissection. *Neurology*, 55 (2) : 304-306, 2000
- 15) 竹下朝規, 石原興平, 長嶺知明：頸椎の異常骨化病変により外傷性頭蓋外椎骨動脈解離をきたした1例. *脳血管内治療*, 4 (4) : 168-172, 2019
- 16) Cushing KE, Ramesh V, Gardner-Medwin D, et al : Tethering of the vertebral artery in the congenital arcuate foramen of the atlas vertebra : a possible cause of vertebral artery dissection in children. *Dev Med Child Neurol*, 43 (7) : 491-496, 2001
- 17) Cakmak O, Gurdal E, Ekinci G, et al : Arcuate foramen and its clinical significance. *Saudi Med J*, 26 (9) : 1409-1413, 2005
- 18) Ahn J, Duran M, Syldort S, et al : Arcuate foramen : anatomy, embryology, nomenclature, pathology, and surgical considerations. *World Neurosurg*, 118 : 197-202, 2018
- 19) 渡部真志, 二宮怜子, 近藤総一, 他：頸部回旋により両側頭蓋外椎骨動脈解離を来して発症した bow hunter 症候群の1例. *脳卒中*, 43 (1) : 42-46, 2021
- 20) Young JP, Young PH, Ackermann MJ, et al : The ponticulus posticus : implications for screw insertion into the first cervical lateral mass. *J Bone Joint Surg Am*, 87 (11) : 2495-2498, 2005
- 21) Pękala PA, Henry BM, Pękala JR, et al : Prevalence of foramen arcuale and its clinical significance : a meta-analysis of 55,985 subjects. *J Neurosurg Spine*, 27 (3) : 276-290, 2017

Editorial Comment

頭蓋外および頭蓋内脳動脈解離は若年性脳血管障害の主要な原因であるが、一般の脳卒中の原因として必ずしも患者数は多くない。そのため、頭痛の原因となる椎骨動脈系の解離についても実臨床では見落とされがちであった。

しかし、脳血管障害の治療の迅速化に伴いMRIが容易に施行されるようになっており、頭痛の原因精査として脳動脈解離の診断が重要になっている。

本報告では偶然に認めた頭蓋外椎骨動脈解離について、その誘因となる頸椎の解剖学的構造の特徴と血管

の動的变化を詳細に考察している。頸部の運動に起因する椎骨動脈解離の発症機序を知る上で重要な報告と考える。一般的になじみが薄い環椎後弓の椎骨動脈溝を覆う変則的な骨化（arcuate foramen 弧状の孔）について、椎骨動脈解離との関係を詳細に記述した内容で救急を含めた臨床の場では知っておきたい知識である。

近畿大学病院 医学研究科 脳神経外科
露口尚弘

