

- 1) 症例報告
- 2) 急性両側性感音性難聴にて発症した動脈硬化性椎骨動脈閉塞の
1例
- 3) 山崎貴明:Takaaki Yamazaki, 森脇寛:Moriwaki Hiroshi,
立田泰之:Yasuyuki Tatsuta, 佐々木雄彦:Sasaki Takehiko,
嶋崎光哲:Shimazaki Mitsunori, 西谷幹雄:Nishiya Mikio
- 4) 函館脳神経外科病院 脳神経外科
- 5) 山崎 貴明 (ヤマサキ タカアキ)
〒041-8609 函館市神山1丁目4番12号
Tel: 0138-53-6111, Fax: 0138-55-3327
E-mail: takataka@mail.hnh.or.jp
- 6) Key words: sudden deafness, Anterior inferior cerebellar
artery, angioplasty and stenting, intracranial atherosclerosis,
internal auditory artery
- 7) 本論文を,日本脳神経血管内治療学会機関誌「JNET
Journal of Neuroendovascular Therapy」に投稿するにあたり,
筆頭演者,共著者によって,国内外の他雑誌に掲載ないし投稿され
ていないことを誓約致します

和文要旨

(目的) 動脈硬化性椎骨動脈閉塞にて、両側性感音性難聴を呈した症例に対し、急性期血行再建術を施行したので報告する。

(症例) 71才男性、眩暈を伴う急速進行性高度難聴をきたし近医耳鼻科より紹介となった。脳血管造影では優位側左椎骨動脈閉塞を認め、両側前下小脳動脈領域の虚血と判断した。緊急で血管形成術を施行するも急性閉塞し、ステントの留置にて再開通を得て、術後より難聴の速やかな改善を得た。

(結論)

両側前下小脳動脈領域の虚血に伴う蝸牛障害にて、急性両側性高度難聴をきたした。急性期血行再建術は有用であるが、血管形成術に際し、ステントの準備は必須かつ治療適応についても慎重な判断が必要である。

緒言

眩暈を伴う急性感音性難聴は、メニエール病や前庭神経炎、内耳炎などの前庭機能障害によるものが多いが、時に前下小脳動脈領域の虚血にて眩暈や難聴をきたすことがある¹⁾。今回我々は、動脈硬化性椎骨動脈閉塞による両側前下小脳動脈 (Anterior inferior cerebellar artery: AICA) 領域の虚血にて、眩暈に引き続き急速に両側性感音性難聴が進行した症例に対し、急性期血行再建を行い症状の改善を得た症例を経験したので報告する。

症例提示

症例：71才、男性

主訴：両側難聴、眩暈、歩行障害

現病歴：昼間仕事中に眩暈を自覚、夜間になり眩暈増悪し救急病院を受診し、耳性眩暈が疑われ耳鼻咽喉科紹介、内服薬にて経過観察となる。しかし翌日になり急速に両側難聴が出現進行し、歩行障害も伴い他院耳鼻咽喉科受診、頭部MRIで脳梗塞を認め当院紹介受診となる。

既往歴：高血圧、糖尿病、5か月前に頭部精査で左椎骨動脈狭窄を指摘され、クロピトグレル75mg/日投与となっていた。

家族歴：特記すべきことなし

嗜好歴：喫煙20本/日 45年間

入院時現症：JCS1（両側高度難聴にて筆談）、顔面の知覚、運動障害および眼球運動障害は認めなかった。左向き水平回旋性眼振、左右の指鼻試験不良、失調性歩行を認めた。

純音聴力検査（pure-tone audiogram: PTA）：右側92.5dB（4分法）の重度難聴、左側72.5dB（4分法）の高度難聴を認めた（Fig.1 A）。

神経放射線学的所見

頭部MRI拡散強調画像（diffusion weighted image: DWI）では両側中小脳脚に高信号を認め（Fig.2.A）、T2強調画像でも両側中小脳脚に高信号が認められた（Fig.2B）。発症5か月前の頭部MRAでは左椎骨動脈に狭窄を認めた（Fig.3A）。入院時頭部MRAでは左椎骨動脈は閉塞し脳底動脈の描出も低下していた（Fig.3B）。脳血管造影では優位側左椎骨動脈閉塞（Fig.4A, B）、右椎骨動脈は、後下小脳動脈

より先は低形成で、脳底動脈近位部、対側の左後下小脳動脈、両側前下小脳動脈まで描出された(Fig. 4D, E)。両側総頸動脈撮影では低形成の後交通動脈から脳底動脈先端部が描出された(Fig. 4 C, F)。以上より、以前より認めていた動脈硬化性左椎骨動脈狭窄病変が閉塞したことにより、両側前下小脳動脈領域に高度な虚血が発生したものと考えられた。難聴が急速に進行しているため再開通療法施行とした。

血管内治療

治療に先立ちクロピトグレル 300mg, アスピリン 200mg のローディング量投与を行い、全身ヘパリン化にて ACT を 250 以上に保つようにした。局所麻酔下、右大腿動脈経由で左椎骨動脈に 6Fr Fubuki ガイディングカテーテル(朝日インテック、愛知)を留置した。先端を J 字型に強くシェイピングした CHIKAI 0.014inch 200cm のマイクロガイドワイヤー(朝日インテック、愛知)を Excelsior SL-10 マイクロカテーテル(Boston Scientific, Natick, MA, USA)とともに閉塞部位まで誘導、閉塞部位でマイクロガイドワイヤーを先行させ閉塞部位を通過した。マイクロカテーテル造影を行い真腔にあることを確認し左後大脳動脈までマイクロガイドワイヤーを誘導した。マイクロガイドワイヤーを ASAHI EXTENSION NV エクステンションワイヤー(朝日インテック、愛知)にて延長しマイクロカテーテルを抜去、Gateway 経皮的血管形成術用バルーン 1.5mm 径×9mm 長(Stryker, Kalamazoo, MI, USA)を閉塞部の遠位より近位部にかけて 1 気圧 20 秒の slow inflation で nominal

6 気圧まで拡張し再開通を得た(Fig.5 A, D)。狭窄が強く残るため Gateway 経皮的血管形成術用バルーン 2.0mm 径×15mm 長に変更、狭窄部に誘導し先ほどと同様に slow inflation による血管拡張を行ったが急性閉塞をきたした(Fig.5B, E)。解離による急性閉塞と判断し、緊急処置として Wingspan 2.5mm 径×15mm 長 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA) 展開留置した。中等度の狭窄は残存するも循環改善を得たためマイクロワイヤーを残した状態で待機し 15 分後の撮影 (Fig.5C, F) でも変化のないことを確認し手技終了とした。

治療後経過

治療翌日の MRI (DWI) (Fig.6 A)では新たな病変は認めず、また MRA でも脳底動脈の良好な血流が確認された(Fig.6B)。治療後急速に難聴は改善し PTA では(Fig.1B)、右側は 20dB(4 分法)、左側も 22.5dB(4 分法)と正常化、また失調性歩行も徐々に改善した。クロピトグレル 75mg/日、アスピリン 100mg/日の抗血小板剤二剤投与を継続、高血圧、糖尿病の内科的管理に加え、禁煙などの生活習慣管理を行い再発なく経過している。術後 12 ヶ月で行った血管造影では再狭窄は認めていない(Fig.6C,D)。

考察

急性感音性難聴は、特発性難聴やメニエール病など耳科的症状と考えられ、耳鼻咽喉科を受診し加療となることが多いが、これと類似した症状が椎骨脳底動脈領域の虚血性脳血管障害にて出現することもある。椎骨脳底動脈系脳梗塞にて難聴をきたす頻度は、1.4%-

8%^{1,2)}と報告によって異なるが稀なものではなく注意が必要である。椎骨脳底動脈系脳梗塞において、前下小脳動脈領域の梗塞頻度は5.5%であったが、特発性難聴をきたした椎骨脳底動脈系脳梗塞のうち前下小脳動脈領域の梗塞は83.3%、後下小脳動脈梗塞は11.9%と報告され³⁾特に前下小脳動脈領域における虚血が難聴をきたす主な原因と考えられている。

前下小脳動脈は通常脳底動脈の尾側1/3、時に中1/3あるいは両側の椎骨動脈合流部から分岐し、橋外側に走り小脳橋角において第7、および第8脳神経と交叉したのち外側枝と内側枝に分岐する。この部位にて外側枝はさらに内耳動脈を分岐する⁴⁾。蝸牛を栄養する内耳動脈は前下小脳動脈の meatal loop から分岐しているが、まれに後下小脳動脈や脳底動脈から分岐することもある³⁾。内耳動脈は通常1 - 数本の終動脈であり、虚血によって蝸牛に不可逆的な障害がおりやすく⁵⁾、一方蝸牛神経は蝸牛と異なり、側副血行が豊富なため虚血には比較的強いと考えられている⁶⁾。Leeらは突然の難聴は前下小脳動脈梗塞の重要な症候で、多くの症例で、聴覚障害と眩暈は蝸牛の虚血性障害により引き起こされていると結論している⁷⁾。

本症例では、優位側左椎骨動脈の血栓性閉塞に伴い、低形成の右椎骨動脈遠位部を介した血流が、脳底動脈近位部、対側の左後下小脳動脈、そして両側前下小脳動脈領域の広範囲を灌流し、また後交通動脈を介した逆行性の側副血行路も乏しいため、両側前下小脳動脈領域が低灌流となった。その結果終動脈である内耳動脈の血流不全によって、蝸牛の機能障害をきたし両側難聴が引き起こされたも

のと考えられた。

Lee らは椎骨脳底動脈領域の脳梗塞で発症した難聴に関して、約 80% の症例ではある程度聴力が回復したが、重度の症例では聴力の回復が不良であると報告している¹⁾。我が国における前下小脳動脈の狭窄、閉塞に伴う前下小脳動脈症候群 46 例について初診時聴力と聴力改善度について検討でも、聴力改善度が評価できた 36 例中（不明例 10 例を除く）不変例は 16 例(44.4%)であり、聴力予後は良好とは言い難い⁸⁾。さらにモルモットを用いた実験では、内耳動脈閉塞による蝸牛の影響として有毛細胞は特に損傷されやすく、内毛細胞は閉塞後約 3 時間で、外毛細胞も約 4 時間で障害され、6 時間後にはラセン器の有毛細胞は消失することが分かっている⁹⁾。そのため重度の聴力障害症例においては、可能な限り早期に血流の改善を得る必要性があると考えられる。

急性期脳主幹動脈閉塞に対する急性期再開通療法においては、主にステントリトリーバーを用いた血管内治療が現在広く行われているが、そのような症例の中には動脈硬化性頭蓋内動脈狭窄 (intracranial atherosclerotic stenosis: ICAS) が基盤となり発症している症例もみられる。Yoon らは血管内治療を行った急性期脳虚血症例の 22.9% が ICAS で、first line の治療としてステントリトリーバーによる機械的血栓回収療法を行い、後に残存狭窄病変に対し血管形成術単独もしくはステントを追加し、その有用性と安全性を報告している¹⁰⁾。本症例においては、動脈硬化性左椎骨動脈狭窄病変の存在を過去の MRA にて確認していたため、バルーンによる血管形成術を先行させた。バルーンによる血管拡張は slow inflation で

行うことは勿論であるが、それでも解離などが生じてしまうことは時に避けられないため、ステントのバックアップは必須である。現在、本邦において動脈硬化性頭蓋内動脈狭窄に対して承認されているステントは自己拡張型である **Wingspan** のみである。しかし、このデバイスは常備できるものではないため、当院では倫理委員会を通じた上、未承認ではあるが、コイル塞栓術支援用ステント、冠動脈用バルーン拡張型ステントを常備し、バックアップ体制をとっている。また我が国における **Wingspan** の適応は、バルーンによる血管形成術時に生じた血管解離、急性閉塞または切迫閉塞に対する緊急処置、他に有効な治療法がないと判断される血管形成術後の再治療とされている¹¹⁾。今回は、血管拡張術後、血管解離による急性閉塞をきたしたため **rescue stenting** として **Wingspan stent** の使用を余儀なくされた。また **ICAS** を基盤とした血行力学的脳虚血が、**branch atheromatous disease** や **thromboembolic occlusion** と比べ頭蓋内ステントのより良い適応と考えられているが¹²⁾、本例も血行力学的脳虚血の改善によって聴力の急速な改善を得たものと考えられる。一方で **SAMMPRIS**¹³⁾からも示されたように、“**snow-plowed**”として知られている動脈硬化性のデブリスが、血管形成時やステント留置時に移動し、狭窄病変近傍から出る穿通枝閉塞をきたす可能性がある¹⁴⁾。さらに椎骨動脈の **V4 segment** の硬膜貫通部は、硬膜が肥厚し線維性の硬膜輪を形成しているため¹⁵⁾、頭部の動きに伴う機械的刺激によるステントの変形、それに伴う内膜損傷による再狭窄、閉塞といった危険性も危惧される。したがって最善の内科的治療に比べ、血行再建の有効性が高いと判断される場合にのみ治療を

行うべきである。

結語

優位側椎骨動脈の動脈硬化性閉塞に伴う内耳動脈の血流不全によって蝸牛の機能障害をきたし両側に高度難聴が引き起こされた症例に対し急性期血行再建術を施行し難聴の急速な改善を得た一例を経験した。血管形成術に際しては Wingspan 等のステント準備は必須であり、また治療適応についても慎重な判断が肝要である。

利益相反開示

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

References

- 1) Lee H, Baloh RW: Sudden deafness in vertebrobasilar ischemia: clinical features, vascular topographic patterns and longterm outcome. J Neurol Sci 2005; 228: 99-104
- 2) Huang CC, Ryu SJ, Chu NS: Sudden bilateral hearing impairment in vertebrobasilar occlusive disease. Stroke 1993; 24: 132-137
- 3) Lee H: Sudden deafness related to posterior circulation infarction in the territory of the nonanterior inferior cerebellar artery: frequency, origin, and vascular topographical pattern. Eur Neurol 2008; 59: 302-306
- 4) Naidich TP, Kricheff II, George AE, et al: The normal

- anterior inferior cerebellar artery. *Radiology* 1976; 119: 355-373
- 5) Perlman HB, Kimura RS, Fernandez C: Experiments on temporary obstruction of the internal auditory artery. *Laryngoscope* 1959; 69: 591-613
 - 6) Mazzoni A: Internal auditory canal arterial relations at the porus acusticus. *Ann Otol Rhino Laryngol* 1969; 78: 797-814
 - 7) Lee H, Sohn S II , Jung DK, et al: Sudden deafness and anterior inferior cerebellar artery infarction. *Stroke* 2002; 33: 2807-2812
 - 8) Kitamura K, Araki S, Kanabayashi H, et al: Anterior inferior cerebellar artery syndrome: A case report. *Oto-Rhino-Laryngology* , Tokyo ; 47: 432-437
 - 9) Kimura R, Perlman HB: Arterial obstruction of the labyrinth. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1958; 67: 5-40
 - 10) Yoon W, KimSK, Park MS, et al: Endovascular treatment and the outcomes of atherosclerotic intracranial stenosis in patients with hyperacute stroke. *Neurosurgery* 2015; 76: 680-686
 - 11) The Japan Stroke Society, The Japan Neurosurgical Society, The Japanese Society for Neuroendovascular Therapy. Guidelines for the proper use of Wingspan stent system for intracranial atherosclerotic disease. *Jpn J Stroke* 2014; 36: 151-162

- 12) Bang OY: Intracranial atherosclerosis: current understanding and perspectives. J Stroke 2014; 16: 27-35
- 13) Chimowitz MI, Lynn MJ, Derdeyn CP, et al: Stenting versus aggressive medical therapy for intracranial arterial stenosis. N Engl J Med 2011; 365: 993-1003
- 14) Fiorella D, Derdeyn CP, Lynn MJ, et al: Detailed analysis of periprocedural stroke in patients undergoing intracranial stenting in Stenting and Aggressive Medical Management for Preventing Recurrent Stroke in Intracranial Stenosis (SAMMRIS). Stroke 2012; 43: 2682-2688
- 15) Fine AD, Cardoso A, Rhoton AL Jr: Microsurgical anatomy of the extracranial-extradural origin of the posterior inferior cerebellar artery. J Neurosurg 1999; 91: 645-652

Figure legends

Figure 1: (A) An initial pure tone audiogram showed a profound hearing loss on the bilateral ear. (B) Follow-up pure tone audiogram showed a recovery of hearing levels.

Figure 2: Magnetic resonance imaging findings. Diffusion weighted image (A) and T2 weighted image (B) of the brain showed hyperdense lesions on bilateral middle cerebellar peduncle.

Figure 3: (A) Magnetic resonance angiography performed on five months before showed stenosis at the left vertebral artery (arrow). (B) The same series on admission showed occlusion of the left vertebral artery.

Figure 4: (A: anteroposterior, B: lateral) The left vertebral angiography showed an occlusion in the V4 segment. (D: anteroposterior, E: lateral) The right vertebral angiogram. Antegrade injection of the proximal basilar artery, bilateral AICAs (arrows), and left side posterior inferior cerebellar artery from the hypoplastic right vertebral artery. The left (C) and right (F) lateral carotid angiogram showed poor retrograde injection into the basilar artery (arrowheads) through posterior communicating arteries.

Figure 5: Transverse wire was navigated to the left posterior cerebral artery through a microcatheter and used to perform angioplasties. After first angioplasty with a 1.5mm Gateway balloon, left vertebral angiogram anteroposterior view (A) and lateral view (D) showed reopening of the vertebral artery with significant residual stenosis (arrows). Additional balloon angioplasty with a 2mm Gateway balloon was performed to improve the stenosis, but it turned out to be an acute occlusion of the vertebral artery (B: anteroposterior E: lateral). Post

angioplasty and stenting, final vertebral angiographic result (C: anteroposterior F: lateral) demonstrating improved antegrade flow and moderate residual stenosis (arrowheads).

Figure 6: Magnetic resonance imaging and angiography performed on the day following the treatment. There were no new lesions on diffusion weighted image of the brain(A) and sufficient flow on angiography (B). Follow-up cerebral angiogram performed 12 months later (C: anteroposterior, D: lateral) demonstrated improvement in the degree of stenosis(arrows).

Fig.2

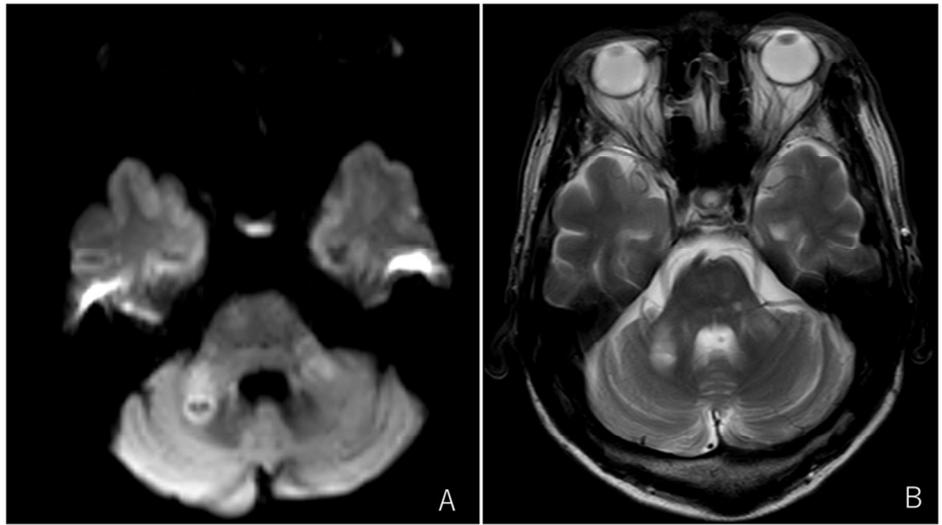


Fig.2

100x56mm (300 x 300 DPI)

Peer Review

Fig.3

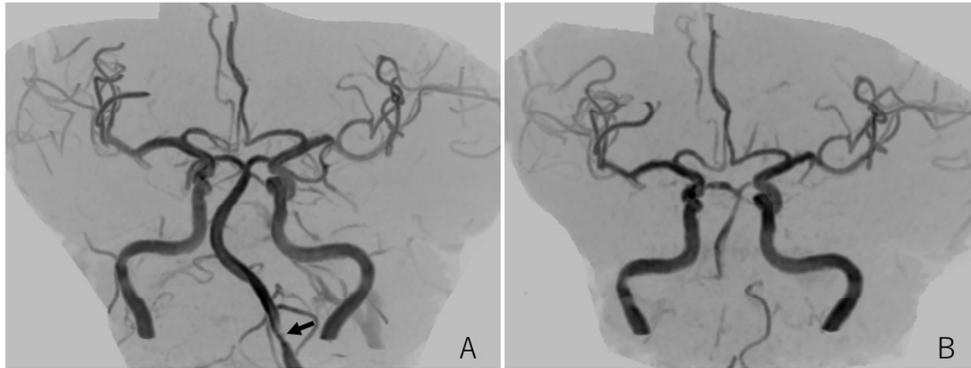


Fig.3

127x71mm (300 x 300 DPI)

er Review

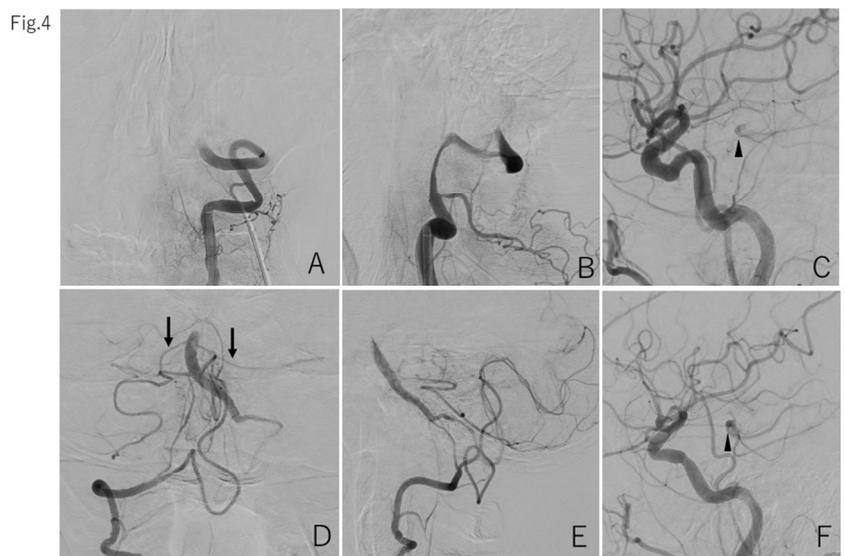


Fig.4

Fig.4

127x71mm (300 x 300 DPI)

er Review

Fig. 5

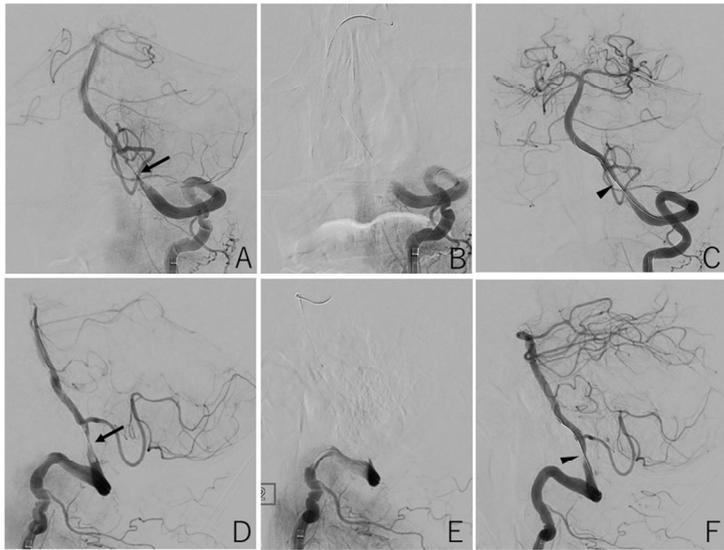


Fig.5

127x71mm (300 x 300 DPI)

er Review

Fig.1

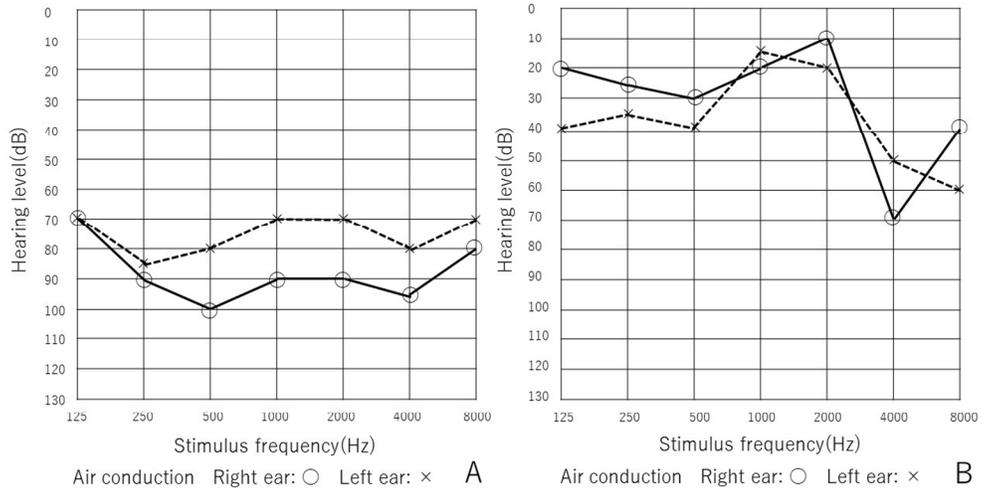
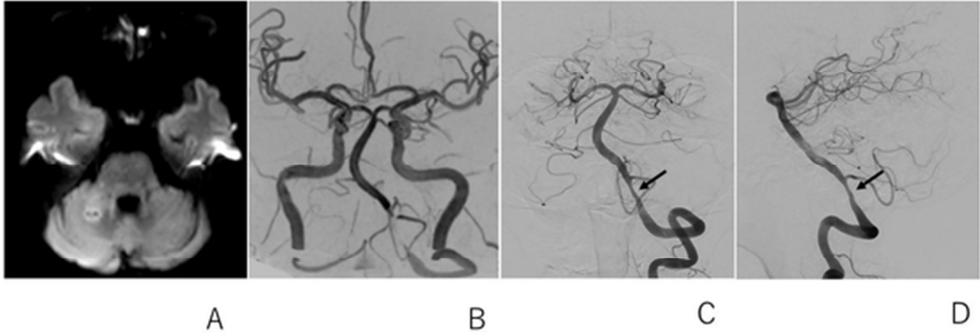


Fig.1

100x56mm (600 x 600 DPI)

Fig. 6



52x29mm (300 x 300 DPI)

er Review