

## 症例報告

## 頸動脈過敏症を合併した頸動脈痛 (carotidynia) の1例

佐藤祥一郎\* 矢澤由加子 板橋 亮 突田 健一 古井 英介

要旨：症例は、右頸部の疼痛と頸部伸展・回旋時の血圧低下を呈した71歳の男性である。頸部血管超音波検査では右内頸動脈に高度狭窄をみとめ、造影CTでは頸動脈球部周囲に造影効果をともなう軟部組織陰影がみられた。18F-FDG PET-CTでは同部に一致した高集積をみとめ、頸動脈痛 (carotidynia) と診断した。約2週間で疼痛は消失し、右内頸動脈の狭窄も中等度まで改善、血圧低下は消失した。頸動脈の動脈硬化に、carotidyniaによる頸動脈洞の血管壁肥厚と血管周囲の炎症が加わることで、頸動脈過敏症を発症したと考えられた。

(臨床神経 2010;50:714-717)

Key words：頸動脈痛、頸動脈過敏症、頸動脈狭窄、頸部血管超音波検査

## はじめに

頸動脈痛(以下 carotidynia)とは、一側頸部の痛みを呈し、頸動脈の血管壁肥厚とその周囲の造影効果をともなう軟部組織陰影をみとめる原因不明の症候群である。近年、画像診断を中心とした症例報告が散見されるが、その病態、発症機序等は未だ不明な点が多い<sup>1)~10)</sup>。Carotidyniaの経過中に頸動脈洞過敏症を呈したまれな1例を経験したので報告する。

## 症 例

症例：71歳 男性

主訴：右頸部の痛み

既往歴：高血圧、脂質異常症あり。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2年前に両側大脳半球、右小脳の大発症性脳梗塞で当院に入院した。経食道心臓超音波検査で大動脈弓部に厚さ8.0mmの潰瘍をともなうプラークをみとめ、大動脈原性脳塞栓症と診断した。このときの頸部血管超音波検査で右頸部内頸動脈の中等度狭窄(収縮期最高血流速度132cm/秒、プラーク厚7.1mm)を指摘された。ホルター心電図で発作性心房細動はなかった。後遺症なく退院し、外来でアスピリン100mg/日、ロサルタン50mg/日、ピタバスタチン2mg/日を投与されていた。外来での血圧は、130/80mmHg前後で安定していた。

入院10日前から右頸部に強い拍動性の痛みが出現した。痛みは頸動脈球部に一致し、嚥下運動により増強した。同時期より頸部伸展・回旋時の眼前暗黒を自覚していた。頭痛、側頭部痛、視力障害の訴えはなかった。

入院時身体所見：身長167cm、体重66kg、体温36.0℃、脈

拍48/分・整であった。座位での血圧147/71mmHg(両側同時測定で左右差なし)。座位のまま頸部を伸展、回旋させると血圧が88/50mmHgまで低下して眼前暗黒を生じた。この間の脈拍増加はみられなかった。右頸下部には拍動性の自発痛あり、圧痛も著明であった。局所の発赤、熱感はなく、顎下腺や頸部リンパ節の腫脹はなかった。歯科的疾患はなかった。側頭動脈の圧痛、硬結はなかった。頸部、鎖骨上窩、腹部、鼠径部いずれの部位でも血管雑音は聴取されなかった。四肢の脈拍は正常に触知された。Horner徴候はみとめなかった。神経学的異常所見をみとめなかった。

入院時検査所見：高感度CRP1.14mg/dlと高値、HDLコレステロールが37mg/dlと軽度低値であった。その他の生化学検査、血算、凝固検査、腫瘍マーカー(癌胎児性抗原、可溶性インターロイキン-2受容体)は基準範囲内であった。拡散強調画像をふくめた頭部MRIでは急性期脳梗塞の所見はなかった。頸部血管超音波検査では疼痛部位に一致して血管壁の肥厚と外膜間径の拡大をみとめ、右頸部内頸動脈の狭窄は以前にくらべて進行し高度狭窄(収縮期最高血流速度231cm/秒、プラーク厚9.2mm)となっていた(Fig.1A)。動脈解離をうたがわせるintimal flapやdouble lumenはみとめず、観察しえた範囲内の鎖骨下動脈、無名動脈、総頸動脈には狭窄病変はなく、高安病をうたがわせる中内膜のびまん性肥厚もみとめなかった。造影CTでは右頸動脈球部周囲に造影効果を有する軟部組織陰影(19mm×15mm)をみとめ(Fig.2)。<sup>18</sup>F fluorodeoxyglucose (18F-FDG) positron-emission tomography (PET)-CTでは同部に一致した高集積をみとめた(Fig.3)。胸腹部骨盤造影CTでは悪性腫瘍を示唆する所見をみとめなかった。

入院後経過：非ステロイド性抗炎症薬を投与し、降圧剤は中止した。約2週間で疼痛は消失した。血圧も150/80mmHg

\*Corresponding author: 広南病院脳血管内科 [〒982-8523 仙台市太白区長町南4-20-1]

広南病院脳血管内科

(受付日：2010年7月1日)

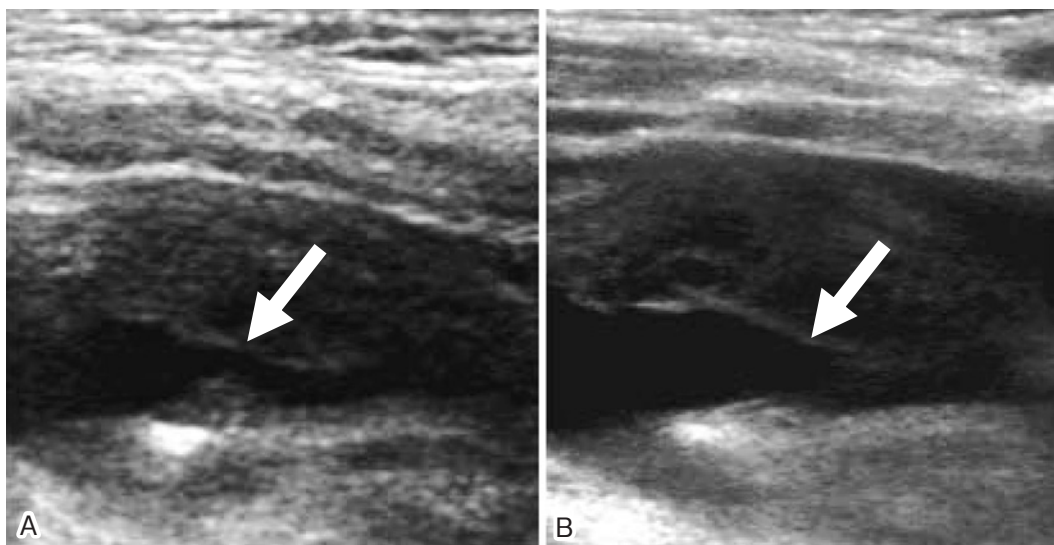


Fig. 1 Ultrasonography of the right carotid bulb in longitudinal section on admission (A) and 2 weeks later (B).  
 (A) Wall thickening and severe stenosis of the right internal carotid artery (arrow). (B) Regression of wall thickening (arrow).



Fig. 2 Enhanced axial CT image shows wall thickening of the right internal carotid artery and soft tissue enhancement surrounding the vessel (arrow). Asterisk, the right external carotid artery.

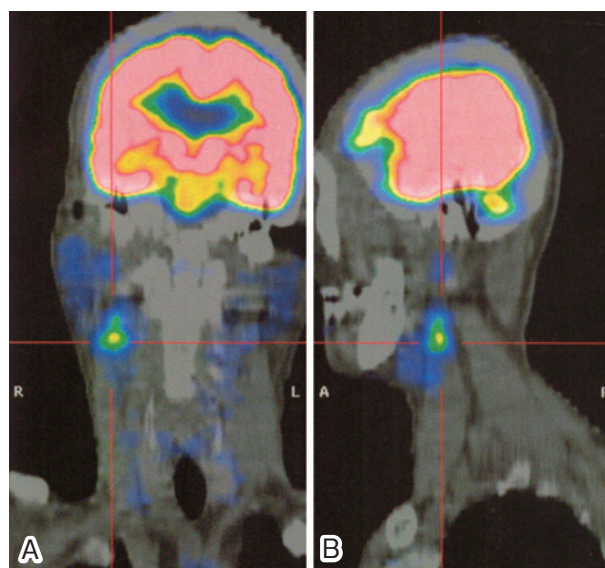


Fig. 3 Coronal (A) and sagittal (B) [<sup>18</sup>F] fluorodeoxyglucose (18F-FDG) positron-emission tomography (PET)-CT fusion images demonstrate increased FDG activity in the area of the right carotid bulb.

前後で安定し、頸部伸展・回旋時の眼前暗黒、血圧低下もみとめなくなった。高感度CRPは0.10mg/dlと正常化し、再検した頸部血管超音波検査では、右内頸動脈の狭窄度は以前と同程度まで改善(収縮期最高血流速度137cm/秒、プラーク厚8.3

mm)していた (Fig. 1B)。降圧剤を再開して退院したが、その後も血圧は安定しており、眼前暗黒もみとめなかった。

### 考 察

Carotidyniaとは、一側頸部の疼痛を呈する症候群であり、1927年にFayによりはじめて報告された<sup>1)</sup>。病理学的には、血管外膜の慢性かつ非特異的な炎症所見をみとめ、巨細胞等

の血管炎に特徴的な所見を欠くと報告されている<sup>2)</sup>。治療としては、非ステロイド性抗炎症薬やステロイド薬がもちいられることもあるが、痛みは2週間以内に自然軽快することが多い<sup>12)</sup>。近年、carotidyniaの画像診断に関する報告が相次いでおり、いずれもCT、MRIで頸動脈球部の血管壁肥厚および、血管周囲の造影効果を有する軟部組織陰影がみとめられている<sup>13)5)8)</sup>。また、PET-CTをもちいた報告では、病変に一致した高集積をみとめ、局所の炎症によるグルコース代謝の亢進を反映していると考えられている<sup>6)</sup>。本症例の経過および検査所見は、これらの報告ときわめて類似しており、動脈解離、血管炎、腫瘍など他疾患も否定的であったことから、carotidyniaと診断した。

本例は、2年前に両側大脳半球、右小脳の多発性脳梗塞を発症しているが、大動脈弓部の潰瘍性プラーク以外には、前方および後方循環に同時に梗塞をきたしうる病変をみとめなかったことより、大動脈原性脳塞栓と診断されている。Carotidyniaや血管炎の関与が問題となるが、発熱、頭痛、頸部痛および視力障害はともなっておらず、頸部血管超音波における右頸部内頸動脈の中等度狭窄病変は動脈硬化病変として矛盾しない所見であり、総頸動脈、鎖骨下動脈に病変はなかった。以上より、2年前の脳梗塞発症時にはcarotidyniaには罹患しておらず、また、高安病や巨細胞性動脈炎などの血管炎の合併もないと考えられた。

本例の特徴は、頸部伸展・回旋時の眼前暗黒、血圧低下がみられた点、carotidyniaの経過にともなって、血管の狭窄度が大きく変化した点である。

頸動脈過敏症とは、頸動脈洞内に存在する圧受容体の機能異常により、ごく軽度の頸動脈洞の刺激でも有症候性の心拍数低下または血圧低下をきたす疾患である<sup>13)14)</sup>。本例では、頸部回旋・後屈をおこなうことで血圧が低下した後に眼前暗黒が出現しており、頸動脈過敏症を合併していると考えられた。われわれの検索しえた範囲で、頸動脈過敏症を合併したcarotidyniaの報告はない。経過とともに頸動脈過敏症をみとめなくなったことをふくめて、きわめてまれな病態と考えられる。頸動脈過敏症は、加齢にともなう動脈硬化との関連が指摘されており、頸動脈洞のコンプライアンス低下のため、圧受容体反射経路における求心性インパルスが減少し、脳幹部の後シナプス性交感神経受容体のup-regulationが生じていると考えられている<sup>14)15)</sup>。また、頸部腫瘍や頸部リンパ節腫大など、圧迫により頸動脈洞の圧受容体が刺激される疾患で頸動脈過敏症を生じる<sup>14)</sup>ことは知られている。本例では、元々存在した頸動脈の動脈硬化に、carotidyniaによる頸動脈洞の血管壁肥厚と血管周囲の炎症が加わることで、圧受容体への刺激が急激に強まり、頸動脈過敏症を発症したと推測される。

Carotidyniaの超音波所見に関する報告では、総頸動脈遠位部から頸動脈分岐部の血管周囲に低エコー輝度の軟部組織をみとめ<sup>4)5)</sup>、血管内腔の軽度の狭小化をともなうこともあると報告されている<sup>3)9)</sup>。しかし、本症例のように高度の狭窄にまでいたったという報告はない。Carotidynia発症前から右内頸動脈に狭窄病変が存在していたことが、本例において高度狭

窄をみとめた理由と考えられる。また、本例では、経過とともにプラークの厚さが減少し、狭窄度は元と同程度まで改善した。Wooらは、エコーで経過を追跡したcarotidynia症例におけるプラークの退縮を報告し、carotidyniaにおける炎症の治癒過程を反映した所見であろうと述べている<sup>7)</sup>。最近の報告では、高感度CRP、serum amyloid A (SAA)、soluble intracellular adhesion molecule-1 (sICAM-1)がcarotidyniaにおける疾患活動性の指標になるという報告がある<sup>10)</sup>。本例でも、入院時に高値であった高感度CRPが2週間後には正常化しており、狭窄度の改善は炎症の治癒過程をみている可能性が高い。

Carotidyniaは、予後良好な疾患であるが、本例のように頸動脈狭窄を有する患者に発症したばあいには、狭窄の進行や頸動脈過敏症による血圧低下により、虚血性脳卒中の誘因となる可能性もある。動脈硬化危険因子を有する患者において、一側頸部痛をみたばあい、carotidyniaも鑑別にふくめた画像診断をおこなうべきである。

本論文の要旨は、第84回日本神経学会東北地方会(2009年3月、仙台)で発表した。

## 文 献

- 1) Burton BS, Syms MJ, Petermann GW, et al. MR imaging of patients with carotidynia. *AJNR Am J Neuroradiol* 2000;21:766-769.
- 2) Upton PD, Smith JG, Charnock DR. Histologic confirmation of carotidynia. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;129:443-444.
- 3) Kuhn J, Harzheim A, Horz R, et al. MRI and ultrasonographic imaging of a patient with carotidynia. *Cephalalgia* 2006;26:483-485.
- 4) Arning C. Ultrasonography of carotidynia. *AJNR Am J Neuroradiol* 2005;26:201-202.
- 5) Kosaka N, Sagoh T, Uematsu H, et al. Imaging by multiple modalities of patients with a carotidynia syndrome. *Eur Radiol* 2007;17:2430-2433.
- 6) Amaravadi RR, Behr SC, Kousoubris PD, et al. [18F] Fluorodeoxyglucose positron-emission tomography-CT imaging of carotidynia. *AJNR Am J Neuroradiol* 2008;29:1197-1199.
- 7) Woo JKH, Jhamb A, Heran MKS, et al. Resolution of existing intimal plaque in a patient with carotidynia. *AJNR Am J Neuroradiol* 2008;29:732-733.
- 8) 丸山裕美子, 遠藤一平, 塚谷才明ら. Carotidyniaの超音波およびCT画像評価. *日耳鼻* 2005;108:168-171.
- 9) Taniguchi Y, Horino T, Hashimoto K. Is carotidynia syndrome a subset of vasculitis? *J Rheumatol* 2008;35:1901-1902.
- 10) Taniguchi Y, Horino T, Terada Y, et al. The activity of carotidynia syndrome is correlated with the soluble intracellular adhesion molecule-1 (sICAM-1) level. *South Med J* 2010;103:277-278.

- 11) Biousse V, Bousser MG. The myth of carotidynia. *Neurology* 1994;44:993-995.
- 12) Emmanuelli JL, Gutierrez JR, Chiossone JA, et al. Carotidynia: a frequently overlooked or misdiagnosed syndrome. *Ear Nose Throat J* 1998;77:462-469.
- 13) 杉山裕章, 相良耕一. 頸動脈洞過敏症. *日本臨床* (0047-1852) 別冊循環器症候群 I. 2007. p. 304-308.
- 14) 井上 博, 相澤義房, 安部治彦ら. 失神の診断・治療ガイドライン. *Circulation Journal* 2007;71:1049-1114.
- 15) O'Mahony D. Pathophysiology of carotid sinus hypersensitivity in elderly patients. *Lancet* 1995;346:950-952.

### Abstract

#### A case of carotidynia with carotid sinus hypersensitivity

Shoichiro Sato, M.D., Yukako Yazawa, M.D., Ryo Itabashi, M.D.,  
Kenichi Tsukika, M.D. and Eisuke Furui, M.D.  
Department of Stroke Neurology, Kohnan Hospital

A 71-year-old man presented with acute, right-sided neck pain and marked falls in blood pressure in response to cervical extension/rotation. Enhanced CT of the right carotid artery showed wall thickening and soft tissue enhancement surrounding the vessel. Ultrasonography demonstrated wall thickening and marked acceleration of the blood flow velocity. [<sup>18</sup>F] fluorodeoxyglucose (18F-FDG) positron-emission tomography (PET)-CT revealed increased FDG activity in the area of the right carotid bulb. The patient's symptoms resolved in 2 weeks with non-steroidal anti-inflammatory drug; regression of wall thickening and decreased velocity were observed on follow-up ultrasonography. A carotid inflammatory process due to carotidynia in addition to atherosclerosis may increase carotid sinus baroreceptor stimulation, resulting in the onset of carotid sinus hypersensitivity.

(*Clin Neurol* 2010;50:714-717)

**Key words:** Carotidynia, Carotid sinus hypersensitivity, Carotid artery stenosis, Carotid ultrasonography

---