

症例報告

転倒後3日目に左上肢単麻痺を突発した左鎖骨下動脈仮性動脈瘤の1例

傳 和真^{1)*} 今井 啓輔¹⁾ 濱中 正嗣¹⁾
 竹上 徹郎²⁾ 大川 和成³⁾ 吉原 靖⁴⁾

要旨：66歳女性。突発した左上肢脱力で救急搬送。左上肢の完全麻痺と全感覚脱失があり、頭部MRIで急性期脳梗塞巣はなかった。病歴の再聴取にて3日前の転倒と左肩打撲歴が判明し、詳細な診察にて左鎖骨部の圧痛と皮下出血斑があった。胸部造影CTにて左鎖骨骨幹部骨折と近傍の造影剤貯留がみられた。外傷性鎖骨下動脈仮性動脈瘤（traumatic subclavian artery pseudoaneurysm; TSAP）の急速増大による腕神経叢障害と診断し、腕神経叢除圧と仮性瘤破裂予防の目的で鎖骨下動脈の母血管閉塞と経皮的ドレナージを緊急に実施した。術後、左上肢の筋力は徐々に回復した。TSAPは、契機となった外傷から時間を経て症状を呈することがあり、突発する上肢単麻痺の鑑別疾患として重要である。

（臨床神経 2020;60:41-45）

Key words：外傷性鎖骨下動脈仮性動脈瘤，上肢単麻痺，腕神経叢障害，血管内治療，脳卒中類似

はじめに

胸部外傷の中で鎖骨下動脈（subclavian artery; SUB-A）の損傷は比較的稀な合併症であり、なかでも外傷性のSUB-A仮性動脈瘤（traumatic SUB-A pseudoaneurysm; TSAP）は非常に稀である。TSAPは受傷直後に症状を呈することが多いが、受傷の数日後から数年後に遅れて症状を呈することもある^{1)~3)}。今回われわれは外傷後3日目に左上肢単麻痺を突発したTSAPの1例を経験した。TSAPは突発する上肢単麻痺の鑑別として重要であり、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：66歳 女性

主訴：突然の左上肢脱力

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2015年5月某日に自宅内で転倒し左肩を打撲した。同部位のわずかな疼痛が持続したものの日常生活に支障はなかった。転倒の3日後に突然、左上肢が動かせなくなり、発症から3.5時間で救急搬入された。

入院時現症：身長155cm，体重50kg，血圧153/74mmHg，

脈拍93/分，体温36.5℃，左上腕動脈および橈骨動脈の拍動触知は良好であった。意識清明。高次脳機能および脳神経系に異常をみとめなかった。左上肢の完全麻痺（MMT0）と全感覚脱失をみとめた。左上肢以外の四肢や体幹に運動・感覚障害はなく、協調運動、深部腱反射、自律神経は正常であった。

検査所見：血液検査ではCRP 0.42 mg/dl，白血球 9,060/μlと炎症反応が軽度上昇していた。その他の血算・生化学・凝固系に異常所見はなかった。胸部レントゲンでは胸部大動脈解離を示唆する所見はなかった。頭部CT・頭部MRI/MRAでは頭蓋内病変をみとめず、追加で実施された頸椎MRIでも頸髄・頸椎神経根に病変はみられなかった。搬入当初より静注血栓溶解療法に向けて初療にあたっていたが、これらの画像所見から脳梗塞以外も鑑別に挙がり、病歴を本人に再聴取したところ、3日前の転倒と左肩打撲の病歴が明らかとなった。そこで、再度詳細に診察したところ、視診にて左肩から前胸部にかけてまだら状の皮下出血斑がみられ、触診にて左鎖骨部の腫脹と圧痛が確認された。皮下出血斑は入院翌日にはさらに明瞭化した（Fig. 1）。追加で実施した胸部造影CTにて左鎖骨骨幹部骨折と、その背側に径60×40mmの造影される腫瘤がみとめられた（Fig. 2）。これらの所見から、突発した左上肢単麻痺の機序として、3日前の転倒を契機とした鎖骨骨折部断端の血管への刺激に起因するTSAPの急速増大に

*Corresponding author: 京都第一赤十字病院脳神経・脳卒中科〔〒605-0981 京都市東山区本町 15-749〕

¹⁾ 京都第一赤十字病院脳神経・脳卒中科

²⁾ 京都第一赤十字病院救急科

³⁾ 京都第一赤十字病院心臓血管外科

⁴⁾ 京都第一赤十字病院整形外科

（Received June 21, 2019; Accepted September 18, 2019; Published online in J-STAGE on December 17, 2019）

doi: 10.5692/clinicalneurology-001332



Fig. 1 Photograph of the external shoulder on the second day after admission.

A red dotted line indicates the subcutaneous bleeding in the patient's left shoulder, which became more obvious on the second day compared to that on admission day. A drainage tube (arrowhead) was inserted into the space where the pseudoaneurysm had been located.

起因する腕神経叢の圧迫性神経障害を疑った。

経過：神経徴候の改善には、TSAP による腕神経叢圧迫の早期解除が必要と判断した。院内の心臓血管外科医と協議した結果、直達手術による SUB-A の trapping と瘤のドレナージでは除圧までに時間がかかると判断し、血管内治療による internal trapping と TSAP の経皮的ドレナージによるハイブリッド手術を実施する方針とした。まず、血管内治療チームにて左椎骨動脈起始部以遠において SUB-A をコイルで閉塞し (Fig. 3; 母血管閉塞術)、続いて心臓血管外科医にて TSAP の経皮的ドレナージをおこなった。母血管閉塞後に左上肢末梢の循環不全を呈した場合には、その時点で心臓血管外科医によるバイパス術を追加する予定であったが、閉塞後も十分な側副血行がみられ (Fig. 3D, E)、左上肢末梢の虚血所見も生じなかったため、同手術の追加はおこなわなかった。

入院翌日、左上肢筋力に変化なかったが、左前腕の感覚は一部回復した。その後、左上肢筋力は徐々に改善したことから、除圧は十分できており、瘤自体の切除までは不要と判断した。入院 5 日目の胸部 CT で TSAP の縮小を確認し (Fig. 2D)、14 日目に自宅退院となった。入院 10 日目の末梢神経伝導検査にて、左正中神経における compound muscle action potential および sensory nerve action potential の振幅低下と F 波の出現率低下、左尺骨神経と左橈骨神経における F 波の出現率低下がみられた。外来でのリハビリテーションを 3 ヶ月間継続した。

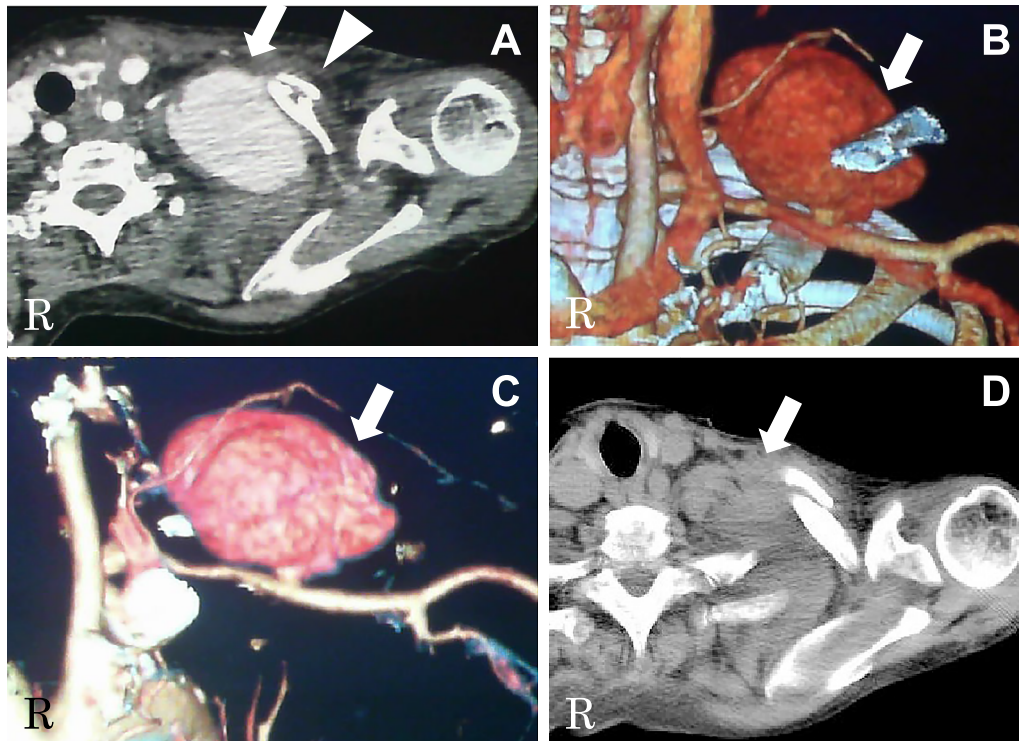


Fig. 2 CT angiograms of the chest (A), and three-dimensional reconstruction images of the left subclavian artery (B–C) on admission day, and CT of the chest on the fifth day (D).

A mass lesion visualized with a pooling contrast agent (A, arrow) behind the left fractured clavicle (A, arrowhead) suggested that the pseudoaneurysm originated from the left subclavian artery (B, C, arrows). Shrunk pseudoaneurysm (D, arrow) was confirmed 5 days after the procedure.

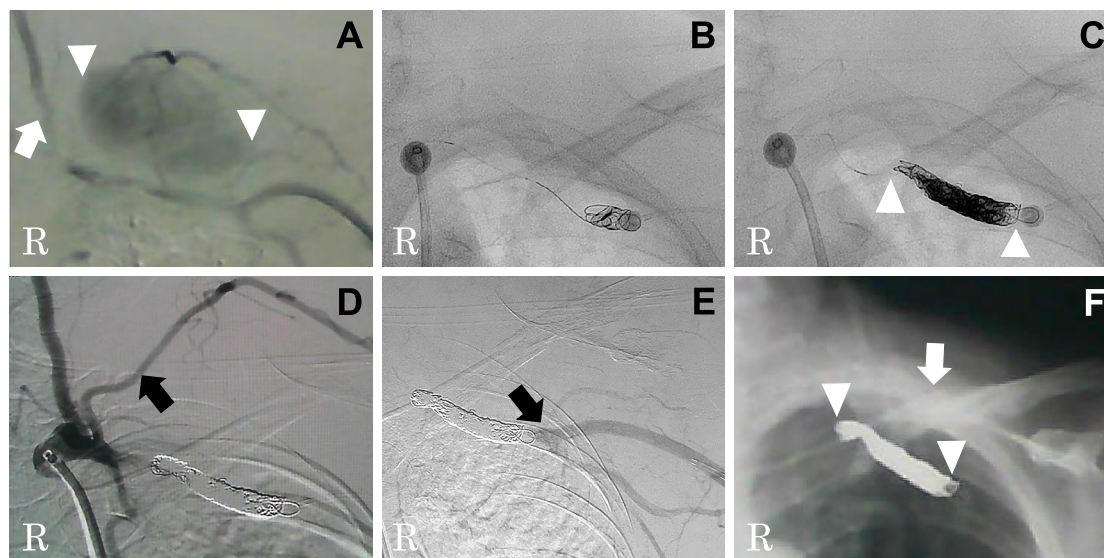


Fig. 3 Digital subtraction angiograms of the left subclavian artery (SUB-A) before (A), during (B–C), and after (D–E) endovascular internal trapping and a chest X ray after the procedure (F).

A pseudoaneurysm (A, white arrowheads) originated from the left SUB-A distal to the left vertebral artery (A, white arrow). The endovascular trapping with multiple coils (C, white arrowheads) for the left SUB-A was performed under flow control by inflating a co-axial balloon of 9 Fr guiding catheter just distal to the left vertebral artery and a co-axial balloon of 5 Fr catheter just proximal to the axillary artery. When the procedure was completed, collateral flow via the left thyrocervical trunk (D, black arrow) into the distal segment of the SUB-A (E, black arrow) was restored. The X ray demonstrates the positional relationship between the coil mass (F, white arrowheads) occluding the SUB-A and the fracture site of the left clavicle (F, white arrow).

結果、左上肢筋力は左肩関節と肘関節が60度まで屈曲可能なレベルまで回復し、感覚障害も左手指の軽度異常感覚を残すのみとなった。

考 察

SUB-Aの破裂や損傷の結果生じるTSAPは、外傷によるものが最も多いとされ⁴⁾、箸⁵⁾や銃⁶⁾などの穿通外傷が報告されている。胸部の鈍的外傷によるSUB-A損傷に伴った例⁷⁾や、本例のように鎖骨骨折片の血管への刺激に起因する例¹⁾⁽²⁾⁽⁸⁾も散見される。その他、中心静脈カテーテル挿入時のSUB-A誤穿刺³⁾など医原性例の報告もある。

SUB-Aの動脈瘤による臨床症状に関しては形成部位や伸展する方向、病態(圧迫、破裂、血栓症・遠位塞栓などの虚血)の違いにより多岐にわたる。TSAPの圧迫症状としては動脈瘤の部位にかかわらず、頸部、胸部、肩などの疼痛が生じうる¹⁾⁽⁷⁾⁽⁸⁾。また、本例と同様に上方に動脈瘤が伸展した場合には、腕神経叢圧迫による上肢の麻痺や感覚障害を起こす¹⁾⁽⁹⁾。腕神経叢は解剖学的に近位部よりroot, trunk, division, cord, nerveに分けられ¹⁰⁾、rootの部分にてC5レベルから横隔神経(鎖骨下筋)、C5~7レベルから長胸神経(前鋸筋)、C5~6レベルから肩甲背神経(肩甲挙筋・菱形筋)がそれぞれ分岐する。本症例は早期の圧迫解除を優先したため、初療時に詳細な徒手筋力検査はおこなっていなかったが、除圧後の診察時には左上肢全体の筋力低下や疼痛とともに、前鋸筋や菱形筋

の筋力低下もみられていたことから、rootを含めた腕神経叢の広範囲な障害が示唆された。瘤による神経損傷の機序としては、神経の直接的圧迫と牽引の両方が推察された。

本症例の特徴は、症状を呈した時期が受傷直後ではなく3日後であり、それも突発したことであった。TSAPでは拍動性腫瘍の緩徐な増大に伴い症状も徐々に進行する例の報告が多いが⁸⁾⁽¹¹⁾⁽¹²⁾、本症例のように受傷数日から数年間経過した後に突然症状を呈することもある^{1)~3)}。症状が突発する機序としては、TSAPの急激な拡大による周囲組織への圧迫¹⁾と、TSAPに関連した血栓の移動による遠位塞栓症の2通りの報告に大別される²⁾。急激な拡大の契機としては、くしゃみ¹⁾や抜管に伴う陽圧換気解除¹³⁾などによる胸腔内圧の急激な変化を推察している報告例があるが、本例ではそのような明確な契機はなかったが、姿勢の変化やその他些細な要因による胸腔内圧の変化にて骨折部断端とTSAPが接触し、腕神経叢側への再増大につながった機序が推察された。

TSAPによる腕神経叢の圧排時には除圧の遅れが上肢機能喪失につながることもあり¹⁴⁾、早期診断が重要となる。しかしながら、本例のようにtPA静注の適応時間内の単麻痺の突発例では、救急初療時にまず脳卒中が疑われ、詳細な病歴聴取や身体診察の前に画像検査が優先される場合もある。実際、本例でも搬入当初、転倒した病歴や左鎖骨部の疼痛に関する患者からの訴えがなかったため、脱衣しての視診はしておらず、同部位の皮下出血斑は確認できていなかった。TSAPの確定診断ツールである胸部造影CTは動脈瘤の大きさや部位

とともに、解剖学的な位置関係も把握できるため、治療方針の決定時にも必須の検査といえる。本例では転倒の病歴や左鎖骨部腫脹(骨折)、左肩の皮下出血斑、脳卒中として非典型的な神経徴候(左上肢単麻痺と左上肢に局限した全感覚脱失)などから TSAP が疑われ、胸部造影 CT が実施されることとなった。なお、外傷性 SUB-A 損傷の 50% は鎖骨骨折を伴うとされており¹⁵⁾、胸部レントゲン上の鎖骨骨折も間接所見として重要であるが、上記のような発症 4.5 時間以内の状況下では、胸部大動脈解離の鑑別に主眼が置かれ、鎖骨にまで注意が回らないことが多いことが予想される。実際、本例では鎖骨の極端な偏位もなく初療時には看過していた。

TSAP の治療に関して、圧迫症状として重度の上肢麻痺を呈している場合には、可及的速やかな除圧が必要となる。TSAP に限らず SUB-A の動脈瘤や血管損傷に対する治療法としては、1990 年以前は鎖骨下動脈の血流遮断下に瘻孔部を閉鎖する²⁾⁽⁸⁾⁽¹³⁾あるいは鎖骨下動脈の母血管閉塞術とバイパス術の組み合わせによる直達手術が選択されていた¹⁶⁾。しかし、TSAP は真性瘤より破裂し易く、部位によっては術野確保やアプローチが難しい場合もある。また、術中の出血時には、盲目的な手技により周囲の神経¹⁷⁾や血管¹⁸⁾を損傷する危険性もある。よって、1990 年以降は低侵襲なカバードステントを用いた血管内手術の報告例が増えてきており、SUB-A の動脈瘤や動脈損傷では良好な成績が示されている¹⁹⁾。本邦でも末梢血管の外傷性または医原性の血管損傷に対する緊急処置目的のステントグラフトであるゴア® バイアバーン® ステントグラフトが使用可能となっており今後は同グラフトが選択される可能性もあるが、本例の受傷当時には同グラフトは本邦未承認であった。一方、TSAP に対してコイルを用いた母血管閉塞術をおこなった報告はわれわれが狩猟しえた限りではなかったが、SUB-A 破裂に対して同手術を実施した報告例はある²⁰⁾。一般的に SUB-A 閉塞時に同側上肢に虚血症状を呈した際の血行再建までの therapeutic time window は比較的広く、本例でも腋窩動脈-腋窩動脈バイパスや左総頸動脈-腋窩動脈バイパスなどのバイパス術については、母血管閉塞術後に左上肢の虚血症状が生じた際に追加する予定であったが、豊富な側副血行のために最終的には実施しなかった。過去にも SUB-A 自体の血栓性閉塞時⁸⁾や、SUB-A に留置したステント閉塞時⁴⁾⁽²¹⁾に症状を呈さなかったという報告例が散見されている。TSAP による腕神経叢障害に対する緊急除圧が必要な際には、コイルを用いた母血管閉塞術と経皮的ドレナージの併用は治療選択肢の一つになると考えられる。

本報告の要旨は、第 103 回日本神経学会近畿地方会で発表した。

※著者全員に本論文に関連し、開示すべき COI 状態にある企業、組織、団体はいずれもありません。

文 献

1) 井上 淳, 寺元秀文, 佐藤亮三ら。鎖骨骨折に伴う鎖骨下仮

性動脈瘤により腕神経叢麻痺をきたした 1 例。中部整災誌 2009;52:1163-1164.

2) 廣瀬 隼, 野村一俊, 福元哲也ら。鎖骨骨折に合併した鎖骨下動脈瘤の 1 例。整形外科 2004;55:1318-1321.

3) van der Weijde E, Vos JA, Heijmen RH. Hybrid repair of a large pseudoaneurysm of the proximal right subclavian artery in a Marfan patient. J Vasc Surg Cases Innov Tech 2017;3:215-217.

4) Maskanakis A, Patelis N, Moris D, et al. Stenting of subclavian artery true and false aneurysm: A systematic review. Ann Vasc Surg 2018;47:291-304.

5) Ueda T, Tajima H, Murata S, et al. Chopstick injury: successful stent-graft therapy for traumatic left subclavian artery aneurysm. J Nippon Med Sch 2017;84:41-44.

6) Mousa A, Chong B, AbuRahma AF, et al. Endovascular repair of subclavian/axillary artery injury with a covered stent. A case report and review of literature. Vascular 2013;21:400-404.

7) Jaiswal LS, Prasad JN, Maharjan R, et al. Giant pseudoaneurysm of subclavian artery after blunt trauma. J Vasc Surg Innov Tech 2018;4:220-222.

8) 名越 真, 古山正人, 中橋 恒ら。外傷性鎖骨下動脈瘤の一例。臨床と研究 1986;63:3985-3987.

9) Davidovic LB, Markovic DM, Pejic SD, et al. Subclavian artery aneurysms. Asian J Surg 2003;26:7-11.

10) 後藤文男, 天野隆弘。臨床のための神経機能解剖学。初版。東京: 中外医学社; 1993. p. 160-161.

11) Mammen S, Koshy GC, Khurana A, et al. Endovascular repair of iatrogenic subclavian artery pseudo-aneurysm. Saudi J Kidney Dis Transpl 2015;26:1023-1025.

12) Saydam O, Seewfli D, Atay M, et al. Endovascular management of right subclavian artery pseudoaneurysm due to war injury in adolescent patient. Case Rep Vasc Med 2017;9030457.

13) 平岩卓根, 長坂裕二, 庄村赤裸ら。右鎖骨下動脈瘤の 1 例。外科 1985;47:770-773.

14) Robbs JV, Naidoo KS. Nerve compression injuries due to traumatic false aneurysm. Ann Surg 1984;200:80-82.

15) Khan LA, Bradnock TJ, Scott C, et al. Fractures of the clavicle. J Bone Joint Surg Am 2009;91:447-460.

16) 渡辺 敦, 道井洋吏, 菊池誠哉ら。動脈硬化性左鎖骨下動脈瘤食道内破裂の 1 治験例。日胸外会誌 1989;37:169-173.

17) Xenos ES, Freeman M, Stevens S, et al. Covered stents for injuries of subclavian and axillary arteries. J Vasc Surg 2003;38:451-454.

18) Castelli P, Caronno R, Piffaretti G, et al. Endovascular repair of traumatic injuries of subclavian and axillary arteries. Injury 2005;36:778-782.

19) Hilfiker PR, Razavi MK, Kee ST, et al. Stent-graft therapy for subclavian artery aneurysms and fistulas: single-center mid-term results J Vasc Interv Radiol 2000;11:578-584.

20) Iida Y, Obitsu Y, Komai H, et al. Successful coil embolization for rupture of the subclavian artery associated with Ehlers-Danlos syndrome type IV. J Vasc Surg 2009;50:1191-1195.

21) du Toit DF, Lambrechts AV, Stark H, et al. Long-term results of stent graft treatment of subclavian artery injuries: management of choice for stable patients? J Vasc Surg 2008;47:739-743.

Abstract

Sudden-onset monoplegia of the upper limb due to traumatic subclavian artery pseudoaneurysm after an interval of three days from tumbling

Kazuma Tsuto, M.D.¹⁾, Keisuke Imai, M.D.¹⁾, Masashi Hamanaka, M.D.¹⁾,
Tetsuro Takegami, M.D., Ph.D.²⁾, Kazunari Ookawa, M.D.³⁾ and Yasushi Yoshihara, M.D., Ph.D.⁴⁾

¹⁾Department of Neurology and Stroke Treatment, Kyoto First Red Cross Hospital

²⁾Department of Emergency, Kyoto First Red Cross Hospital

³⁾Department of Cardiovascular Surgery, Kyoto First Red Cross Hospital

⁴⁾Department of Orthopaedic Surgery, Kyoto First Red Cross Hospital

A 66-year-old woman was admitted to our institution with sudden-onset weakness of her left upper limb. Neurological examination revealed monoplegia and sensory loss of the limb. A brain MRI did not find evidence of an acute ischemic stroke. Her medical history revealed that she had fallen and bruised her shoulder 3 days earlier. Detailed physiological examination revealed that there was a mild subcutaneous ecchymosis with tenderness in the left shoulder. An additional contrast-enhanced chest CT scan showed a fracture of the clavicle diaphysis and a pooling contrast agent demonstrating a 60*40 mm mass near the left subclavian artery (SUB-A) which suggested a pseudoaneurysm. We determined that her symptoms were due to compression of the brachial plexus by immediate growth of a traumatic SUB-A pseudoaneurysm (TSAP) due to her earlier fall. For reduction of pressure to the brachial plexus by the TSAP and prevention of rupture, an endovascular treatment team performed endovascular internal trapping of the left SUB-A just distal to the orifice of the left vertebral artery and a cardiovascular surgeon performed percutaneous drainage of the pseudoaneurysm. After the procedure, the palsy and sensory loss of the left hand gradually improved. A TSAP could be one of the causes of sudden-onset palsy of the upper limb within a few days after a fall.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2020;60:41-45)

Key words: traumatic subclavian artery pseudoaneurysm, monoplegia of upper limb, brachial plexopathy, endovascular treatment, stroke mimics
