

症例報告

Susceptibility-weighted imaging で一過性の皮質静脈拡張を認め 前兆のある片頭痛発作が示唆された 1 例

和田 晋一^{1)*} 津崎 光司¹⁾ 杉山 華子²⁾
菊井 祥二²⁾ 竹島多賀夫²⁾ 濱野 利明¹⁾

要旨：症例は 41 歳男性，35 歳時より月 1 回の頻度で前兆のない片頭痛を経験していた。2020 年 10 月某日に突然同僚の名前を想起できなくなり，その後徐々に側頭部痛と悪心を自覚し当院受診となった。来院時，左側頭部の拍動性頭痛と人の名前を想起できない症状に加えて，失算，左右失認を認めた。発症 3 時間後の脳 MRI では susceptibility-weighted imaging (SWI) で左大脳半球に皮質静脈の拡張を認めた。発症 42 時間後までに頭痛を含めた神経症状は経時的に改善し，SWI で皮質静脈の拡張は改善した。本症例では SWI 所見の推移から，前兆のある片頭痛の初発発作が示唆された。

(臨床神経 2021;61:482-485)

Key words：前兆，片頭痛，susceptibility-weighted imaging，脳卒中

はじめに

突発発症の神経巣症状を呈する疾患として，脳血管障害を考慮することは重要であるが，脳血管障害以外の疾患において類似症状を呈することがある¹⁾。片頭痛性前兆は鑑別すべき病態である。MRI によりこれらの病態の鑑別は可能とされているが，片頭痛発作時の MRI 画像所見に関しては十分なエビデンスは示されていない。今回，急性発症の頭痛と人の名前を思い出せない症状や失算，左右失認を呈し，MRI 画像所見の推移から前兆のある片頭痛の初回発作が示唆された症例を経験したので報告する。

症 例

症例：41 歳，右利き，男性

主訴：人の名前が思い出せない，頭痛，悪心

既往歴：35 歳から前兆を伴わない片頭痛（性状：悪心を伴う片側性，拍動性頭痛，頻度：月 1 回，仕事の多い休日に多い）。

飲酒歴：なし。喫煙歴：現在喫煙，5～10 本/日を 20 年間。

家族歴：母に詳細不明の頭痛歴あり。

内服薬：なし。

現病歴：2020 年 10 月某日（第 1 病日）午後 2 時頃，就業

中，椅子に座って電気系統の監視をしていた際に，周囲を見渡すと複数の同僚の名前を思い出せないことに気づいた。その後，徐々に右側頭部に軽度の拍動性頭痛を自覚した。鎮痛剤を服薬せずに様子をみていたところ，同日午後 4 時頃には右側頭部痛は軽減，消失したが，新たに左側頭部に重度の拍動性頭痛を自覚し，頭痛の強度はピークに達した。頭痛は体動により増強し，悪心も出現したため，同日午後 4 時 45 分に当院救急搬送となった。

入院時現症：身長 179 cm，体重 66 kg，体温 35.9℃，血圧 128/97 mmHg，脈拍 68/分・整，末梢動脈酸素飽和度 99%（room air）。眼瞼結膜に貧血なく，眼球結膜に毛様充血を認めず，頸部リンパ節腫脹や頸部硬直はなかった。胸部では心音・呼吸音に異常はなく，腹部に異常を認めなかった。来院時神経学的所見として，高次脳機能評価では従命は可能で自発言語あり，発語の流暢性は保たれており，2 語文，3 語文の復唱や物品呼称は可能で，失書はなかったが，左右失認と失算を認めた。脳神経系には明らかな異常を認めなかった。また，四肢に明らかな筋力低下，感覚障害，失調はなく，四肢腱反射は正常であった。来院時の頭痛は，左側頭部の重度の拍動痛で，体動により増悪し，また，体動により嘔吐の誘発を認めた。光・音過敏性は明らかでなく，眼球結膜の充血や流涙，鼻汁漏はなかった。

検査所見：入院時，血算，生化学で明らかな異常所見を認

*Corresponding author: 関西電力病院脳神経内科〔〒 553-0003 大阪府大阪市福島区福島 2-1-7〕

¹⁾ 関西電力病院脳神経内科

²⁾ 富永病院脳神経内科・頭痛センター

(Received January 18, 2021; Accepted March 1, 2021; Published online in J-STAGE on June 18, 2021)

doi: 10.5692/clinicalneurology-001589

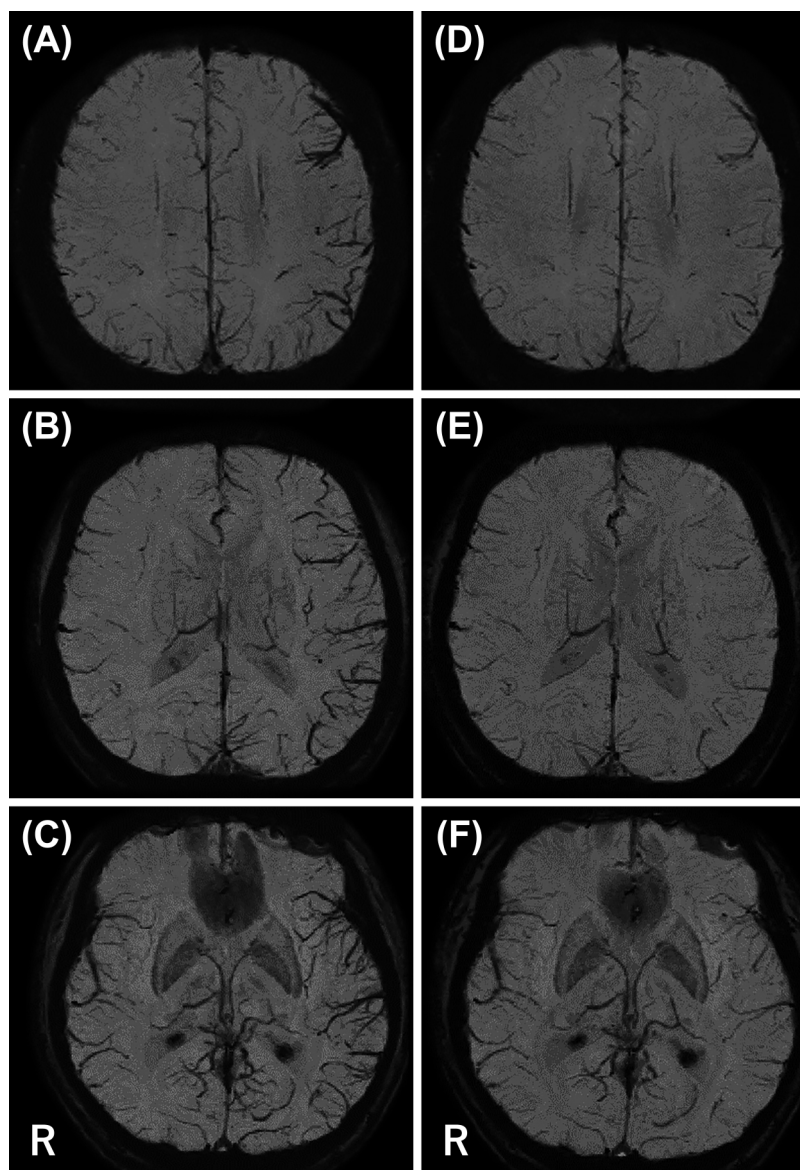


Fig. 1 Axial view brain MRI on days 1 and 3.

(A)–(C) Susceptibility-weighted images showing dilation of cortical veins of the left hemisphere on day 1. (D)–(F) Dilation of cortical veins was improved on day 3 (TR 49 ms, TE 40 ms). R: right, TE: echo time, TR: repetition time.

めず、凝固系では d-dimer 値は $0.1 \mu\text{g/dl}$ 未満で正常であった。入院時頭部 MRI では、拡散強調画像で異常所見はなく、FLAIR 画像で脳実質内に明らかな病変を認めなかったが、susceptibility-weighted imaging (SWI) 画像で左大脳半球優位に皮質静脈の拡張を認めた (Fig. 1A–C)。MR Angiography では脳血管攣縮を示唆する脳動脈狭窄所見はなく、静脈系に関しては造影 CT で左横静脈洞の描出は不良であったが、硬膜動静脈瘻など血管奇形を示唆する所見を認めなかった (Fig. 2)。

臨床経過：発症第 1 病日午後 7 時には人の名前を想起できるようになり症状は改善傾向にあった。しかし、造影 CT で左横静脈洞の描出不良であったため、脳静脈洞血栓症の可能

性を考慮しヘパリン 5,000 単位/日での持続静注を開始した。発症第 2 病日午前 7 時の時点で左右失認や失算症状は消失しており、発症第 3 病日午前 8 時には頭痛は消失した。発症第 3 病日に撮像した頭部 MRI では、SWI で皮質静脈の拡張の改善を認めた (Fig. 1D–F)。発症第 3 病日撮影の造影 CT で左横静脈洞の描出に変化なく、脳静脈洞血栓症は否定的で低形成と判断し、ヘパリン持続静注を終了した。髄液検査では明らかな異常はなく、追加の血液検査では、プロテイン C、プロテイン S 欠損症や抗リン脂質抗体症候群など血液凝固異常をきたす疾患を示唆する所見を認めなかった。頭痛の特徴と SWI 所見から、前兆のある片頭痛の初回発作の可能性が考えられた。発症第 6 病日の SWI で皮質静脈の再度拡張がないこ

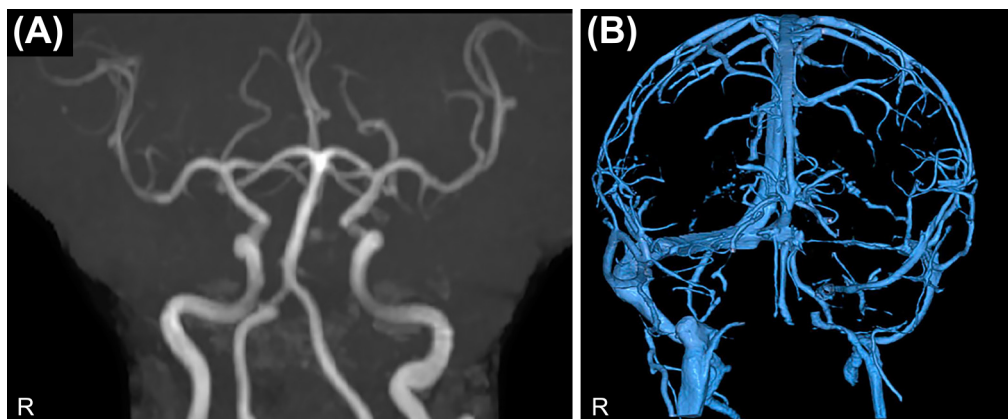


Fig. 2 Brain MR angiography and contrast CT images.

(A) MR angiography image showing no stenosis suggesting reversible cerebral vasoconstriction syndrome. (B) Contrast CT showing left transverse sinus hypoplasia with no significant venous occlusion. R: right

とを確認し、発症第7病日に塩酸ロメリジン 10 mg/日内服開始し、自宅退院とした。

考 察

本症例は人の名前を思い出すことができない症状が先行した後に片側の拍動性頭痛を自覚し、来院時の診察では左右失認と失算を認めた。片頭痛性前兆は、頭痛に先行し 60 分以内に消失することが一般的であるが、前兆のある片頭痛症例の 17% では前兆症状が遷延することがある²⁾。前兆症状として、本症例で認めた人の名前を想起できない症状は既報で示されているが、失算や左右失認は前兆症状としては具体的な報告はない³⁾。人の名前を想起できない症状は優位半球の側頭極などの側頭葉病変が責任病巣と推測されている⁴⁾。さらに本症例では左右失認と失算を伴っており、優位半球頭頂葉を含めた広範な領域の病変が推定されたため、脳血管障害との鑑別を慎重に行った。

SWI は局所の磁場を乱す構造を強調した画像であり、デオキシヘモグロビン、ヘモジデリン、フェリチン、カルシウムを含む構造物で低信号を呈する⁵⁾。従来から片頭痛の機序として血管説と神経説が考えられており、血管説ではセロトニンによる脳血管収縮、神経説では皮質拡張性抑制現象(cortical spreading depression, 以下 CSD と略記) 発生による毛細血管内抵抗増大が前兆時の局所脳血流低下を引き起こすとされている⁶⁾⁷⁾。実際に片頭痛発作の前兆時には、arterial spin labeling などの画像で脳血流量の低下が証明されており、時に複数の血管領域に及ぶとの報告もある^{6)8)~11)}。したがって、脳血流量低下による脳内酸素消費量の増加に伴う皮質静脈内のデオキシヘモグロビンの増加を反映して、SWI で皮質静脈が一過性に明瞭化すると推測される⁸⁾¹²⁾。また、近年 CSD による副交感神経経路の活性化や一過性の脳皮質の腫脹による脳内圧力変化が皮質静脈の拡張を誘発することが示唆されており、本症例における SWI での皮質静脈拡張所見と関連した可

能性がある¹³⁾。実際に前兆のある片頭痛の症例では、SWI 画像で皮質静脈の拡張が認められるとの報告が散見されるが^{8)9)14)~17)}、SWI の画像変化を経時的に追った報告は少ない⁸⁾¹⁷⁾。本症例では現時点で 2 回以上の発作を認めていないため前兆のある片頭痛の確定診断には至らないが、頭痛歴、頭痛の性状、短期間での SWI の画像変化から前兆のある片頭痛の初回発作と推測される。また、前兆症状として稀な一過性の優位半球頭頂葉症状を認めた点が特徴的である。神経巣症状が先行し急性発症の頭痛を発症した症例では、前兆のある片頭痛発作を鑑別疾患にあげ、SWI を撮像し画像変化を追うことが診断に有用な手段と考えられた。

※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) Adam G, Ferrier M, Patsoura S, et al. Magnetic resonance imaging of arterial stroke mimics: a pictorial review. *Insights Imaging* 2018;9:815-831.
- 2) Viana M, Afridi S. Migraine with prolonged aura: phenotype and treatment. *Naunyn Schmiedeberg's Arch Pharmacol* 2018;391:1-7.
- 3) Vincent MB, Hadjikhani N. Migraine aura and related phenomena: beyond scotomata and scintillations. *Cephalalgia* 2007;27:1368-1377.
- 4) Semenza C. Naming with proper names: the left temporal pole theory. *Behav Neurol* 2011;24:277-284.
- 5) Adachi Y, Sato N, Saito Y, et al. Usefulness of SWI for the detection of iron in the motor cortex in amyotrophic lateral sclerosis. *J Neuroimaging* 2015;25:443-451.
- 6) 永田栄一郎. 片頭痛の病態に関する最新の知見. *臨床神経* 2020;60:20-26.
- 7) 鈴木則宏. Cortical spreading depression と脳微小循環. *脳循環代謝* 2012;23:8-15.
- 8) Shimoda Y, Kudo K, Kuroda S, et al. Susceptibility-weighted imaging and magnetic resonance angiography during migraine

- attack: a case report. *Magn Reson Med Sci* 2011;10:49-52.
- 9) Fandler-Hofler S, Enzinger C, Gattringer T, et al. Speechless from pain: migraine with prolonged aura. *Lancet* 2020;25:e11.
 - 10) Burns R, Malherbe MD, Chadenat ML, et al. Arterial spin-labeled mr imaging detecting biphasic neurovascular changes in migraine with persistent aura. *Headache* 2017;57:1627-1628.
 - 11) Dodick DW, Roarke MC. Crossed cerebellar diaschisis during migraine with prolonged aura: a possible mechanism for cerebellar infarctions. *Cephalalgia* 2008;28:83-86.
 - 12) Zouitina Y, Terrier M, Hyra M, et al. Prolonged acute migraine with aura and reversible brain MRI abnormalities after liquid sclerotherapy. *J Headache Pain* 2014;15:41.
 - 13) Schain AJ, Melo-Carrillo A, Stratton J, et al. CSD-induced arterial dilatation and plasma protein extravasation are unaffected by Fremanezumab: implications for CGRP's role in migraine with aura. *J Neurosci* 2019;39:6001-6011.
 - 14) Kellner-Weldon F, Lehmann VF, Breiding PS, et al. Findings in susceptibility weighted imaging in pediatric patients with migraine with aura. *Eur J Paediatr Neurol* 2020;28:221-227.
 - 15) Cobb-Pitstick KM, Munjal N, Safier R, et al. Time course of cerebral perfusion changes in children with migraine with aura mimicking stroke. 2018;39:1751-1755.
 - 16) Breiding PS, Kellner-Weldon F, Grunder L, et al. Quantification of cerebral veins in patients with acute migraine with aura: a fully automated quantification algorithm using susceptibility-weighted imaging. *PLoS One* 2020;15:e0233992.
 - 17) Karaarslan E, Ulus S, Kurtuncu M. Susceptibility-weighted imaging in migraine with aura. *AJNR Am J Neuroradiol* 2011;32:E5-E7.

Abstract

A case of suspected migraine with aura: transient cortical venous dilatation visualized by susceptibility-weighted imaging

Shinichi Wada, M.D., Ph.D.¹⁾, Koji Tsuzaki, M.D.¹⁾, Hanako Sugiyama, M.D.²⁾,
Shoji Kikui, M.D., Ph.D.²⁾, Takao Takeshima, M.D., Ph.D.²⁾ and Toshiaki Hamano, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾ Division of Neurology, Kansai Electric Power Hospital

²⁾ Department of Neurology, Headache Center, Tominaga Hospital

A 41-year-old man was admitted with proper name anomia and headache of sudden onset. He had a history of migraine without aura from the age of 35. Neurological examination on admission showed acalculia, proper name anomia, left-right disorientation and severe left-sided headache with nausea. Susceptibility-weighted MRI revealed dilatation of cortical veins of the left hemisphere. MR angiography and contrast CT revealed no cerebral arterial or venous occlusion. The patient's proper name anomia was improved at 5 hours from the onset and acalculia and left-right disorientation were improved at 17 hours from the onset. At 42 hours from the onset, he had recovered from his headache, and the dilatation of cortical veins of the left hemisphere had disappeared. Acalculia and left and right disorientation are rare presentations of migraine with aura. Susceptibility-weighted imaging may be a useful tool to distinguish migraine with aura from stroke and stroke mimics.

(*Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol)* 2021;61:482-485)

Key words: aura, migraine, susceptibility-weighted imaging, stroke