



後脊髄動脈領域の梗塞により同側のonion-skin patternの顔面感覚の異常と上肢の深部感覚障害を来した1例

芦崎, 太一郎 ; 十河, 正弥 ; 坂東, 美樹 ; 橋本, 黎 ; 的場, 健人 ; 古東, 秀介 ; 千原, 典夫 ; 関口, 兼司 ; 松本, 理器

(Citation)

脳卒中, 47(1):25-30

(Issue Date)

2025-01-25

(Resource Type)

journal article

(Version)

Version of Record

(Rights)

© 2025 日本脳卒中学会

Attribution-NonCommercial-NoDerivatives 4.0 International

(URL)

<https://hdl.handle.net/20.500.14094/0100495974>



後脊髄動脈領域の梗塞により同側の onion-skin pattern の 顔面感覚の異常と上肢の深部感覚障害を来した 1 例

芦崎太一朗¹  十河 正弥¹  坂東 美樹¹ 橋本 黎¹ 的場 健人¹
古東 秀介¹ 千原 典夫¹ 関口 兼司¹ 松本 理器¹

要旨：後脊髄動脈領域の梗塞は脊髄梗塞の中でも稀であり，延髄下部から上位頸髄の背側領域の障害を来すことがある．延髄下部では三叉神経脊髄路核と楔状束は解剖学的に近接しているが，今回後脊髄動脈領域の梗塞により両部位が障害され，特異的な感覚障害を呈した症例を経験した．症例は 74 歳，男性．突然の上肢優位の左上下肢の深部感覚障害と onion-skin pattern の左顔面感覚障害を呈した．MRI で延髄下部から上位頸髄の梗塞を認め，MRA と CT-angiography の所見から左椎骨動脈解離が疑われた．体性感覚誘発電位で左後索障害を示す所見を認めた．アスピリンの内服とリハビリテーションを継続し，発症 3 カ月後には左上肢の深部感覚障害と左顔面の感覚障害の改善を認めた．顔面の異常感覚と同側の上肢の深部感覚障害は，延髄下部から上位頸髄の病変で起こり，通常の頭部 MRI 撮影で見逃しやすい部位であり，注意が必要である．

Key words: posterior spinal artery, onion-skin pattern, proprioceptive sensation, somatosensory evoked potential

緒 言

後脊髄動脈領域の梗塞は脊髄梗塞の中でも稀であるが，延髄下部から上位頸髄の背側領域の障害を来す¹⁾．同領域には後索のうち，上肢の深部感覚の経路である楔状束と三叉神経脊髄路核が位置しており，両部位は近接している．顔面の温痛覚は，三叉神経脊髄路核の末梢側と中枢側とで障害される範囲の分布が異なり^{2,3)}，中枢側では三叉神経脊髄路核の障害により，口や鼻を中心とした同心円状のいわゆる onion-skin pattern を認める⁴⁻⁶⁾．今回，後脊髄動脈領域の梗塞により，上肢優位の深部感覚障害と同側顔面の onion-skin pattern の異常感覚という特異的な感覚障害を呈した症例を経験したので報告する．

症例呈示

患者：74 歳 男性

主訴：左上肢の動きを制御できない，左顔面および左上肢の異常感覚

既往歴：脂質異常症

家族歴：特記事項なし

生活歴：職業 配送業，喫煙なし，飲酒なし

現病歴：入院 5 日前に，工作中に荷物を持ち上げた際に左頸部痛を自覚した．その後より左上肢全体のしびれ感を自覚した．近医で頭部 MRI を撮影されたが，異常所見を認めなかった．入院 3 日前には異常感覚は左上肢から左頸部の C3 領域まで広がり，また左上肢の位置を把握できず，壁などにぶつかり制御できないため「左上肢が勝手に動いてしまう」と自覚するようになった．症状が持続しており，再度近医を受診したところ頸部 MRI を撮影され，延髄下部左側から上位頸髄左側にかけて T2 強調画像で高信号域を認め，精査目的に当院へ紹介された．

入院時現症：血圧 121/69 mmHg，脈拍 78 回/分・整，呼吸数 14 回/分，体温 36.6℃．一般身体所見に特記すべき異常所見なし．意識清明で，左顔面の耳側のみの

¹ 神戸大学大学院医学研究科脳神経内科学

責任著者：〒650-0017 兵庫県神戸市中央区楠町 7 丁目 5 番 1 号
神戸大学大学院医学研究科脳神経内科学 十河正弥

E-mail: masat43@med.kobe-u.ac.jp

(2024 年 4 月 16 日受付，2024 年 6 月 11 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.11252

本論文は，クリエイティブ・コモンズ CC-BY-NC-ND (表示-営利利用不可-改変禁止) の条件下で利用できる．© 2025 日本脳卒中学会



障害で鼻側は障害されていない, いわゆる onion-skin pattern の温痛覚低下・しびれ感を認めた (Fig. 1A). 同部位の触覚は正常であった. 顔面筋力は左右ともに正常で, 左上肢は近位筋・遠位筋ともに Manual Muscle Test (MMT) 4 程度の筋力低下を認めた. 右上肢の筋力低下は認めなかった. 四肢の腱反射は正常で, 病的反射を認めなかった. 左頸部から左手指まで左上肢の異常感覚と触覚低下, 左上肢の遠位および近位ともに著明な位置覚と振動覚の低下を認め, 左下肢にも位置覚と振動覚の低下を軽度認めた (Fig. 1B). 指鼻試験は左上肢で著明に拙劣であったが視覚補正で改善し, 踵膝試験は左下肢で軽度拙劣であった. 歩行は不安定で, ロンベルク徴候陽性であった.

検査所見: 血液検査ではクレアチニン 1.21 mg/dl, LDL-コレステロール 157 mg/dl と, ともに軽度上昇を認めた. 血清抗 aquaporin4 (AQP4) 抗体・抗核抗体・抗 HTLV-1 抗体は陰性で, sIL-2R も上昇を認めなかった. 髄液検査では細胞数 $1/\text{mm}^3$ 以下と上昇を認めず, 蛋白 63 mg/dl と軽度高値を認めたのみで, IgG index の上昇はなく, オリゴクローナルバンドは陰性であった.

入院時画像所見: 延髄下部～上位頸髄にかけて T2 強調画像で高信号域を認めた (Fig. 2A). 造影効果は明らかでなかった.

入院後経過: 当初原因として脊髄炎を否定できなかったため, 各種自己抗体を提出の上, メチルプレドニゾロン 1000 mg を 3 日間点滴投与したが, 症状の改善を認めなかった. 上述の検査所見と併せて脊髄炎は否定的と考え, 入院 9 日目に DWI を含めた頸部 MRI を撮像した. 入院前の頸部 MRI で延髄下部から上位頸髄の左背側の T2 強調画像で認めた高信号病変は, DWI で高信号・apparent diffusion coefficient map (ADC map) で低信号であった. 冠状断では, 延髄下部では背内側・上位頸髄では外側に高信号域を認めた (Fig. 2B-G). 頭部 MRA および脳血管 3D-CT-angiography (CTA) では, 左椎骨動脈の V4 領域に pearl and string sign 様の所見を認め (Fig. 3A, B), basi-parallel anatomical scanning (BPAS) 画像は, 椎骨動脈の外径の左右差は見られず (Fig. 3C), 左椎骨動脈の低形成は否定的と考えた. 短潜時体性感覚誘発電位 (SSEP) では, 左正中神経刺激で N13 の振幅の低下を認め N20 が描出されなかったが, 右正中神経刺激では N13 および N20 ともに描出され, 左後索の障害として矛盾しない結果であった (Fig. 4). 塞栓源検索では, 24 時間ホルター心電図検査および経胸壁心臓超音波検査を行い, 明らかな異常所見を認めなかった.

本症例は, 左上肢優位の深部感覚障害を認めたこと,

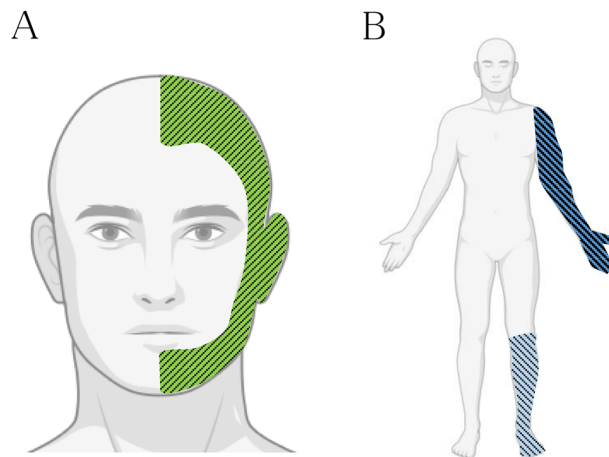


Fig. 1 顔面の温痛覚低下領域 (緑色斜線部) (A), 深部感覚障害の部位 (青色斜線部) (B)

A: Onion-skin pattern の温痛覚低下を認めた.

B: 左上肢優位の左上下肢に深部感覚障害を認めた.

Created with BioRender

および左顔面の onion-skin pattern の温痛覚障害を認めたこと, 触覚は保たれていたことから, 毛帯交叉より遠位の左楔状束および左三叉神経脊髄路核の中部から下部の障害が疑われた. 頸部 MRI の DWI においても, 延髄下部の背内側から上位頸髄の背外側に異常信号域を認め, 脊髄梗塞と診断した. 梗塞領域は左後脊髄動脈の支配領域であり, 原因として明らかな塞栓源はなく, 発症時の左頸部痛の症状があったこと, 左椎骨動脈の pearl and string sign 様の 3D-CTA と頭部 MRA の所見を踏まえて左椎骨動脈解離によるものと考えた. ただし, 本症例においては脳血管撮影を行っておらず, また 3D-CTA と MRA では intimal flap や double lumen の所見を認めなかったため, 脳動脈解離の診断基準⁷⁾では疑い例にとどまり, アテローム血栓性脳梗塞の可能性も否定できないと考えられた.

治療としてアスピリン 100 mg/日の内服を開始した. 入院後症状の悪化を認めず, 発症 30 日目に回復期リハビリテーション病院へ転院し, 発症 90 日目に自宅退院した.

発症 96 日目の外来受診時には, 左上肢の深部感覚障害は著明に改善しており, MRI の再検でも延髄下部から上位頸髄の T2 強調画像高信号病変は縮小していた. MRA では, 発症時と比較し, 左椎骨動脈は著変を認めなかった. 患者から論文発表についての同意を得た.

考 察

本症例は, 左後脊髄動脈領域の梗塞により左上肢の著明な深部感覚障害と左顔面の特異的な分布の温痛覚障害

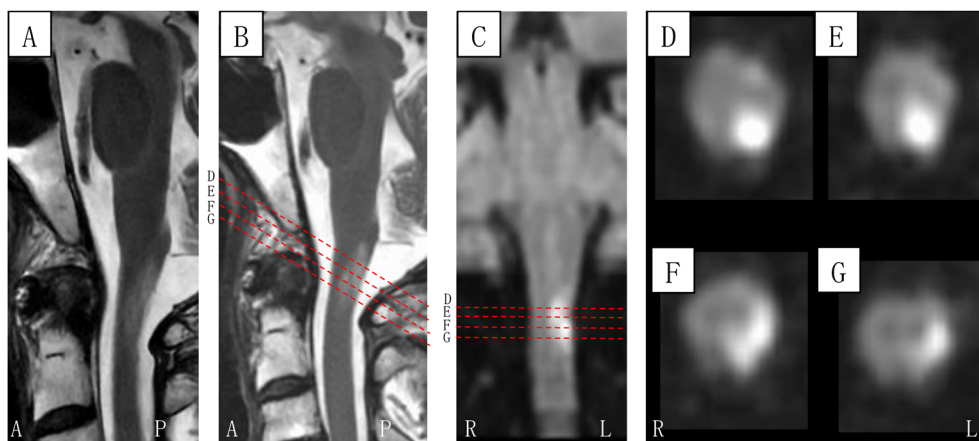


Fig. 2 頸部 MRI T2 強調画像 矢状断像 (入院時) (A), 頸部 MRI (入院 9 日目) (B-G), T2 強調画像 矢状断像 (B), DWI 冠状断像 (C), DWI 水平断像 (D-G)

A: 延髄下部から上位頸髄にかけて高信号域を認める.

B-G: 延髄下部では背内側に, 上位頸髄では外側に DWI 高信号域を認める.

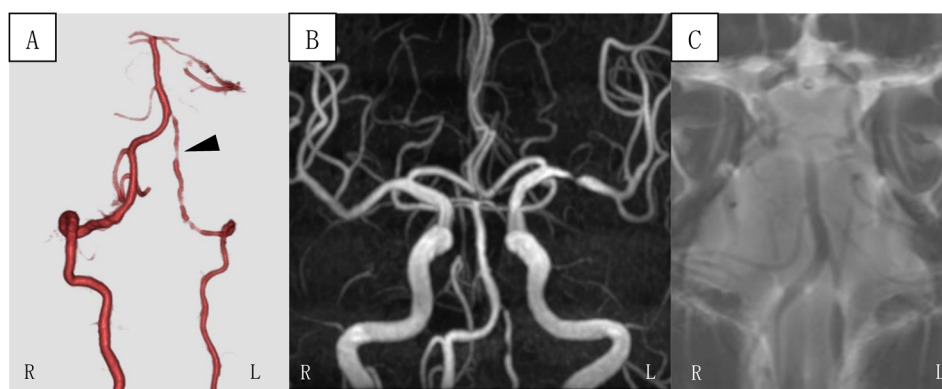


Fig. 3 脳血管 3D-CT-angiography (入院 18 日目) (A), 頭部 MRA (入院 9 日目) (B), 頭部 MRI BPAS 画像 (入院 9 日目) (C)

左椎骨動脈 V4 領域に pearl and string sign 様の所見を認める (矢頭). また, BPAS 画像で椎骨動脈の外径の左右差は見られなかった. BPAS: basi-parallel anatomical scanning

を示した. 障害部位は毛帯交叉より遠位の左楔状束および左三叉神経脊髄路核の下部の障害が考えられた.

脊髄梗塞は脳梗塞と比べ頻度は少なく, すべての中枢神経血管障害の中で 1.2% を占めるにすぎない⁸⁾. また, 脊髄梗塞の中でも前脊髄動脈領域の梗塞が大部分を占め, 本症例のような後脊髄動脈領域の梗塞は稀であり⁹⁾, Zalewski らは脊髄梗塞 133 例の中で 15 例 (11%) であったと報告している. 理由として後脊髄動脈は前脊髄動脈と比して細く断続的であり, 叢状に張り巡らされており, 側副血行路が発達している¹⁰⁾ ことが挙げられる. 発症の初期 (発症後 0-1 日) においては正常の MRI 所見であったが, 後の再検 (発症 1 日後以降) において指摘できる例も報告されている¹⁰⁾. また, 14 例の献体

を用いての後脊髄動脈の走行の解析においては, 後脊髄動脈は椎骨動脈もしくは後下小脳動脈から分岐しており, 後脊髄動脈すべてに延髄枝が確認されており, 延髄下部においては後脊髄動脈の分枝によって背側の血流が供給されていることが示されている¹¹⁾. 頸部の後脊髄動脈領域の梗塞 16 例をまとめた報告では, 6 例 (38%) において椎骨動脈解離が原因と指摘されている¹⁾. 椎骨動脈解離が原因で後脊髄動脈領域の梗塞が起こる理由としては, 椎骨動脈解離により椎骨動脈から分岐する後脊髄動脈の血流低下を来すことが考えられている¹²⁾. また, 同報告¹⁾において, 他部位の梗塞の合併は延髄 6 例 (38%), 小脳に 4 例 (25%) に認めている. 小脳に梗塞を認めない場合でも, 椎骨動脈解離による後脊髄動脈領

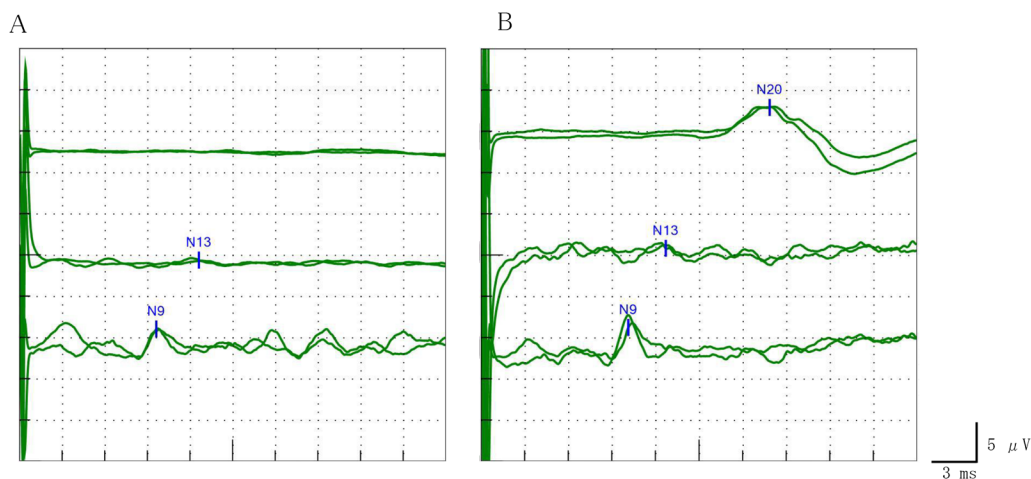


Fig. 4 体性感覚誘発電位 (A : 左正中神経刺激, B : 右正中神経刺激)

左正中神経刺激ではN13の振幅低下がみられ、N20は導出できなかった。右正中神経刺激ではともに導出可能であった。

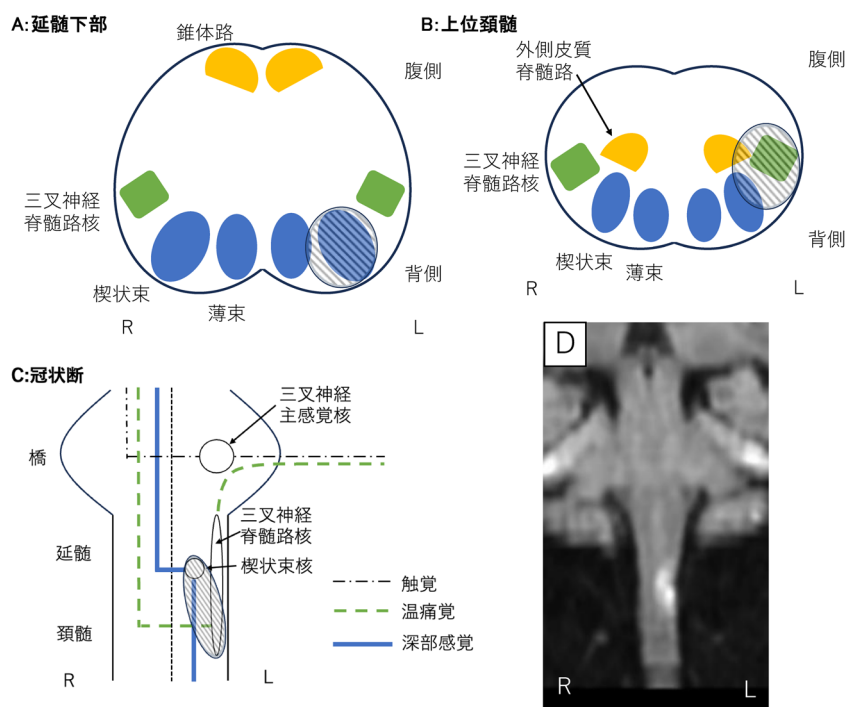


Fig. 5 本症例で推定された障害部位 (斜線部) (A : 延髄下部, B : 上位頸髄, C : 冠状断, D : 頸部 MRI DWI 冠状断像) 延髄下部では左楔状束を含む背内側, 上位頸髄では左三叉神経脊髄路核を含む外側の障害と考えられた。

域の梗塞があることに留意する必要がある。

本症例においても、左椎骨動脈解離が原因で後脊髄動脈領域の梗塞を発症し、延髄下部から上位頸髄の左背側領域の障害を来したと考えられた。

延髄梗塞において、本症例のような同側の感覚障害は比較的稀である。Kim らは 174 例の延髄梗塞において同側に感覚障害を示した症例は、12 例 (6.7%) 見られたと報告している¹³⁾。その中で本症例と同様に、振動覚

が障害された症例は 6 例、固有感覚も障害された症例は其中で 4 例 (2.3%) に見られた。全例が延髄下部に病変を有し、さらに背内側に病変を認めた。また、同側に感覚障害を来していない症例においては、延髄下部および背内側に病変を来す例は少ない。後索の中でも延髄下部の障害で同側の固有感覚の障害を来す理由として、一般的に神経核は神経線維に比べ梗塞によって障害を受けやすいため、延髄下部に位置する薄束核と楔状束核が障

害されることが原因と推測されている¹⁴⁾。実際に本症例においても、SSEPにおいて左正中神経刺激においてN20が描出されず、N13は見られていたことから、第7頸髄後角から上位の後索の障害を示唆する所見であった。また、しびれ感についても後脊髄動脈領域の梗塞で報告されており¹⁵⁾、外側の脊髄後索の障害により障害部位以下のしびれ感が生じる。本症例においては左上肢の近位筋・遠位筋共にMMT4程度の筋力低下を認めた。延髄下部病変で同側の筋力低下を来す理由としては、錐体交叉後の外側皮質脊髄路が障害されたと考えられる。

三叉神経の感覚は、触覚と温痛覚で脳幹内の走行が異なる。触覚は橋中部に位置する三叉神経主感覚核を經由して対側の視床後内側腹側核に至るのに対して、温痛覚は橋からの入力後に延髄下部から上位頸髄（第2頸髄）に位置する三叉神経脊髄路核まで下降した後に対側に交叉し、三叉神経視床路を通して視床後内側腹側核に至る¹⁶⁾。その際、口周囲の感覚は三叉神経脊髄路核の上部に位置し、顔面周囲の感覚は下部に位置する^{2,3)}。本症例においては、三叉神経脊髄路核の下部のみの障害であったため、顔面の中でも口周囲の温痛覚は保たれているものと考えられた。

本症例では、延髄下部では楔状束核が位置する背内側に、上位頸髄では三叉神経脊髄路核が位置する外側に連続する病変を認めた（Fig. 5）ため、このような特異的な症候を示したと考えられた。

結 語

Onion-skin patternの顔面感覚障害および同側の上下肢の深部感覚障害は、後脊髄動脈領域の脊髄梗塞で起こる。同様の症状を認めた場合は延髄下部から、通常の頭部MRI検査で撮像範囲に含まれない上位頸髄も含めて病変を検索することが重要である。

利益相反

著者は日本脳卒中学会へのCOI自己申告を完了しており、本論文の発表に関して、開示すべきCOIはない。

参考文献

- 1) Sakurai T, Wakida K, Nishida H: Cervical posterior spinal artery syndrome: a case report and literature review. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 2016; 25: 1552–1556
- 2) Peker S, Sirin A: Primary trigeminal neuralgia and the role of pars oralis of the spinal trigeminal nucleus. *Med Hypotheses* 2017; 100: 15–18
- 3) 千葉雅俊, 高橋哲: 三叉神経障害を生じる病態の鑑別診断について. *日口腔外会誌* 2020; 66: 540–552
- 4) Ouyang F, Li J, Zeng H, et al.: Unilateral upper cervical posterior spinal cord infarction caused by spontaneous bilateral vertebral artery dissection. *Neurology* 2022; 99: 473–474
- 5) Das A, Shinde P, Kesavadas C, et al.: Teaching neuroimages: onion-skin pattern facial sensory loss. *Neurology* 2011; 77: e45–e46
- 6) 村田浩人, 和賀志郎, 小島精ら: 蛇行した椎骨動脈による延髄圧迫の1例. *Neurol Surg* 1995; 23: 349–353
- 7) 高木誠: 脳動脈解離（Cerebral arterial dissection）の診断と治療の手引き, 若年者脳卒中診療の手引き. 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. 大阪, 国立循環器病センター, 2003, pp 85–90
- 8) Sandson TA, Friedman JH: Spinal cord infarction. Report of 8 cases and review of the literature. *Medicine (Baltimore)* 1989; 68: 282–292
- 9) Yadav N, Pendharkar H, Kulkarni GB: Spinal cord infarction: clinical and radiological features. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 2018; 27: 2810–2821
- 10) Zalewski NL, Rabinstein AA, Wijdicks EFM, et al.: Spontaneous posterior spinal artery infarction: an under-recognized cause of acute myelopathy. *Neurology* 2018; 91: 414–417
- 11) Wang CX, Cironi K, Mathkour M, et al.: Anatomical study of the posterior spinal artery branches to the medulla oblongata. *World Neurosurg* 2021; 149: e1098–e1104
- 12) Chen F, Liu X, Qiu T, et al.: Cervical posterior spinal artery syndrome caused by spontaneous vertebral artery dissection: two case reports and literature review. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 2020; 29: 104601
- 13) Kim JS: Sensory symptoms in ipsilateral limbs/body due to lateral medullary infarction. *Neurology* 2001; 57: 1230–1234
- 14) Caplan LR, Chang YM: Severe unilateral proprioceptive loss in medullary-rostral spinal cord infarction. A posterior spinal artery syndrome. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 2021; 30: 105882
- 15) Vuillier F, Tatu L, Camara A, et al.: Unusual sensory disturbances revealing posterior spinal artery infarct. *Case Rep Neurol* 2012; 4: 23–27
- 16) 後藤文男, 天野隆弘: 臨床のための神経機能解剖学. 東京, 中外医学社, 1992, pp 20–21

Abstract**Facial sensory impairment with an onion-skin pattern and deep sensory impairment in the upper limb on the ipsilateral side due to posterior spinal artery infarction: a case report**

Taichiro Ashizaki,¹  Masaya Togo,¹  Miki Bando,¹ Rei Hashimoto,¹ Kento Matoba,¹ Shusuke Koto,¹ Norio Chihara,¹ Kenji Sekiguchi,¹ and Riki Matsumoto¹

¹Division of Neurology, Kobe University Graduate School of Medicine

The posterior spinal artery infarction is a rare occurrence among spinal infarctions and causes the infarction at the dorsal part of the inferior medulla oblongata to the upper cervical cord. Anatomically, in the inferior medulla oblongata, the trigeminal nerve spinal tract nucleus is close to the fasciculus cuneatus. We experienced a case with characteristic sensory impairment by the posterior spinal artery infarction. A 74-year-old man presented with sudden proprioceptive impairment in his left upper and lower limbs, along with sensory deficits on the left side of his face with an onion-skin pattern. MRI revealed the infarction extending from the inferior medulla oblongata to the upper cervical cord. The etiology of the infarction was presumed to be a dissection of the left vertebral artery based on findings from MRA and CT-Angiography. Somatosensory evoked potential demonstrated the disturbance of the left dorsal column tract. He started taking aspirin and underwent rehabilitation. Three months after the onset, the impairment of the proprioception of his left upper limb and the sensation of the left side of his face improved significantly. This case underscores the importance of considering the infarction spanning from the inferior medulla oblongata to the upper cervical cord in patients presenting with ipsilateral facial sensory and upper limb proprioception impairments. Careful investigation is warranted, as routine brain MRI scans may not always capture lesions in the superior cervical cord.

Key words: posterior spinal artery, onion-skin pattern, proprioceptive sensation, somatosensory evoked potential

(Jpn J Stroke 47: 25–30, 2025)