

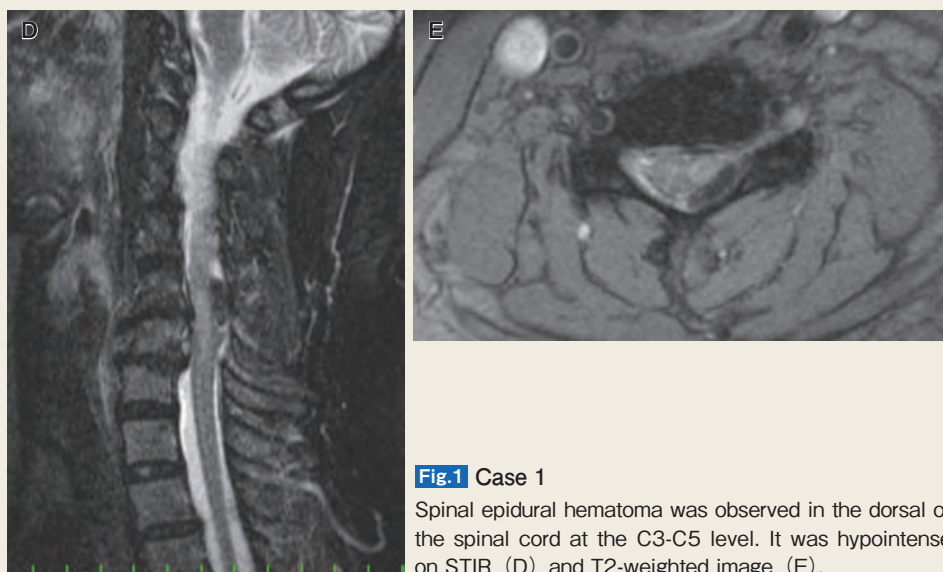
〈脳神経外科速報 vol.32 no.4 e20223204a, 2022〉

## 特発性脊髄硬膜外血腫と急性期脳梗塞との臨床的鑑別 ～文献的考察を加えて～

海老瀬広規<sup>1)</sup>, 久保田有一<sup>1)</sup>, 稲塚万佑子<sup>1)</sup>, 菊池麻美<sup>1)</sup>, 高橋祐一<sup>1)</sup>, 新井直幸<sup>1)</sup>,  
大淵英徳<sup>1)</sup>, 萩原信司<sup>1)</sup>, 糟谷英俊<sup>1)</sup>

1) 東京女子医科大学附属足立医療センター脳神経外科 〒123-8558 東京都足立区江北 4-33-1

### Key Slide



# Clinical Differentiation of Spontaneous Spinal Epidural Hematoma with Acute Ischemic Stroke: Review of Literature

Hiroki EBISE<sup>1)</sup>, Yuichi KUBOTA<sup>1)</sup>, Mayuko INAZUKA<sup>1)</sup>, Asami KIKUCHI<sup>1)</sup>,  
Yuichi TAKAHASHI<sup>1)</sup>, Naoyuki ARAI<sup>1)</sup>, Hidenori OBUCHI<sup>1)</sup>, Shinji HAGIWARA<sup>1)</sup>,  
Hidetoshi KASUYA<sup>1)</sup>

1) Department of Neurosurgery, Tokyo Women's Medical University, Adachi Medical Center

**Background:** Spontaneous spinal epidural hematoma (SSEH) is a relatively rare condition with sudden cervical pain and paresis as typical symptoms; however, it sometimes presents with hemiparesis and may need to be differentiated from acute cerebral infarction. At our institution, seven cases of SSEH presenting with hemiparesis were misdiagnosed as acute cerebral infarction in the past 10 years, and acute cerebral infarction treatment including intravenous rt-PA therapy was performed. For the purpose of clarifying the importance of suspecting SSEH in stroke practice, we report a case and a review of the literature.

**Materials and methods:** We examined seven cases of SSEH treated at our hospital between December 2008 and October 2021. We focused on the initial symptoms, neurological manifestations, and treatment outcomes.

**Result:** We studied seven cases of SSEH with hemiparesis at the early stage of onset. The mean age of onset was 67.7 years (51-78 years), and the ratio of males to females was 3:4. All patients presented with neck pain, shoulder pain, or back pain in the early stage of onset. There were no cranial nerve symptoms, such as facial palsy,

dysarthria, and trapezius muscle paralysis, in all seven patients. There was one patient with bilateral sensory disturbance (case 2), and no patient with Horner's syndrome. The diagnosis was confirmed by cervical spine MRI. In six of the seven patients, cervical CT showed hematoma in the spinal epidural space, which could be diagnosed by CT. Of the four patients who misdiagnosed as cerebral infarction and initially treated, two were treated with intravenous recombinant tissue plasminogen activator, however, none had worsening pain or neurological symptoms after treatment.

**Conclusion:** SSEH may cause hemiparesis when it develops in the cervical spinal cord; thus, it is important to differentiate it from cerebral infarction.

**Key Words :** spontaneous spinal epidural hematoma (SSEH), stroke, rt-PA (recombinant tissue plasminogen activator)

(Received October 21, 2021; Accepted December 2, 2021)

Correspondence to Yuichi KUBOTA, M.D.,

Department of Neurosurgery, Tokyo Women's Medical University, Adachi Medical Center, 4-33-1 Kohoku, Adachi-ku, Tokyo, 123-8551, JAPAN

E-mail: kubota.yuichi [at] twmu.ac.jp

## I. 緒言

---

特発性脊髄硬膜外血腫は、突然の頸部痛と麻痺を典型症状とする比較的まれな疾患<sup>1, 2)</sup>であるが、しばしば片麻痺を呈し脳梗塞との鑑別を要することがある。我々の施設では過去に片麻痺発症の特発性脊髄硬膜外血腫の7例を経験し、そのうち4例で脳梗塞と診断し、rt-PA (recombinant tissue plasminogen activator) 静注療法を含め、脳梗塞急性期治療を行っていた。脳卒中診療における特発性脊髄硬膜外血腫を疑うことの重要性を明らかにすることを目的として、自験例について検討し文献的考察を加え報告する。

## II. 対象と方法

---

2008年12月から2021年10月まで当院で入院加療を行った片麻痺発症の特発性脊髄硬膜外血腫7例について、初発症状、神経学的症状、治療転機を検討した。なお腰椎穿刺後や脊椎手術後の医原性脊髄硬膜外血腫については対象外とした。当院では急性期脳卒中疑いの患者が来院した場合、脳神経外科医が、①頭部単純CTによる頭蓋内評価、②CTA (computed tomography angiography) による脳血管評価とCTP (computed tomography perfusion imaging) による還流評価を行い、脳梗塞や脳出血を鑑別している。以上から急性期脳梗塞と考えられた場合、rt-PAや機械的血栓回収療法の適応を判断している。また、腎機能障害や喘息既往など、ヨード造影剤のリスクが高いと考えられた場合や診断に窮した際にはMRI (magnetic resonance imaging) も追加して評価を行っている。本論文の症例もこのプロトコルに従って診断・評価を行った。本研究は患者・被検者の承認、所属施設における倫理委員会の承認を得て行った。

## III. 結果

---

発症初期に片麻痺を呈した特発性脊髄硬膜外血腫について、自験例7例について検討した (Table 1)。平均発症年齢は、67.7歳 (51～78歳) と比較的高齢で、男女比は3:4だった。発症初期には全例で頸部痛、肩痛または背部痛を呈した。また、表情筋運動障害や構音障害など脳神経系の障害をきたしたものは認めず、僧帽筋運動についても、全7例で異常は認めなかった。感覚障害を呈したものは1例で両側の温痛覚障害だった (case 2)。Horner 徴候を呈したものはなかった。全例で頸椎MRIにより確定診断を行ったが、7例中6例では後方視的に頸部CTでも脊髄硬膜外腔に血腫を認めた。1例 (case 3) はCTでは血腫と脊髄がほぼ等吸収で境

**Table 1** Summary of our cases of spontaneous spinal epidural hematoma with hemiparesis

case	Age (years)	Sex (M/F)	initial presentation chief complaint	treatment for ischemic stroke	hours to diagnosis	treatment for SSEH	outcome	diagnosis of CT
case 1	51	F	left hemiparesis, neck pain	rt-PA	48	surgery	good recovery (mRS2)	+
case 2	78	F	right hemiparesis, neck pain, sensory disturbance	(-)	5.5	surgery	good recovery (mRS2)	+
case 3	77	M	right hemiparesis, neck pain	warfarin	32	surgery	moderately disabled (mRS4)	-
case 4	61	M	right hemiparesis, neck pain	rt-PA	63	conservative	good recovery (mRS2)	+
case 5	61	F	right hemiparesis, neck pain	(-)	3.3	surgery	good recovery (mRS2)	+
case 6	77	F	left hemiparesis, neck pain	aspirin	41	conservative	complete recovery (mRS1)	+
case 7	60	M	left hemiparesis, neck pain	(-)	2	conservative	good recovery (mRS2)	+

界も不明瞭であり CT 単独での診断は困難と判断した。脳梗塞と誤診され初期治療が開始されたものは 4 例で、うち 2 例で rt-PA 静注療法が施行されていたが、治療開始後に疼痛や神経症状が増悪したものはなかった。

#### IV. 代表症例

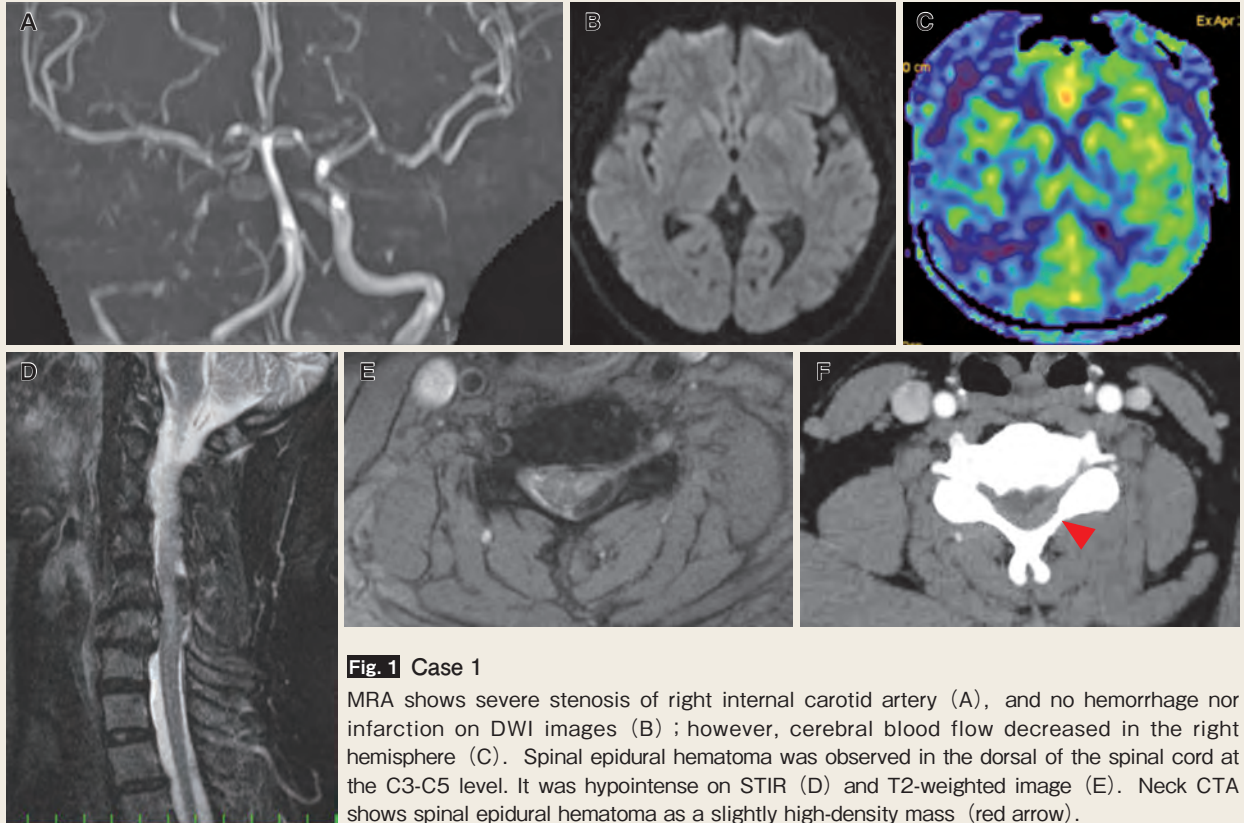
##### 〈case 1〉 51 歳女性.

**主 訴**：後頸部痛，左上下肢不全麻痺.

**既往歴**：高血圧症，脂質異常症.

**家族歴**：特記事項なし.

**現病歴・治療経過**：突然の後頸部痛と左上下肢麻痺を認め、発症から約 1 時間で当院に脳卒中および大動脈解離の疑いで救急搬送された。意識清明で、表情筋運動や構音障害、僧帽筋運動など、脳神経系に明らかな異常はなく、左上下肢に MMT3 程度の不全麻痺を認めた。明らかな温痛覚障害は認めなかった。疼痛は発症時が最大でその後は緩徐に改善傾向だった。救急科医師により先行して胸腹部造影 CT が施行され、大動脈解離は認めず、造影剤使用量を考慮して、CTA および CTP は行わず、頭部 MRI を施行した。頭部 MRI では拡散強調像で急性期虚血性変化は認められなかった (Fig. 1B) が、MRA で右内頸動脈が描出不良であり (Fig. 1A)，急性期脳梗塞と診断し rt-PA 静注療法を施行した。rt-PA 投与後も左上下肢の不全麻痺に変化はみられず、第 2 病日の MRI でも新規の脳梗塞は認めず、しかし cerebral blood flow (CBF) は相対的に右大脳半球の血流低下を認めたため、脳虚血として



**Fig. 1** Case 1

MRA shows severe stenosis of right internal carotid artery (A), and no hemorrhage nor infarction on DWI images (B); however, cerebral blood flow decreased in the right hemisphere (C). Spinal epidural hematoma was observed in the dorsal of the spinal cord at the C3-C5 level. It was hypointense on STIR (D) and T2-weighted image (E). Neck CTA shows spinal epidural hematoma as a slightly high-density mass (red arrow).

加療を継続した。第3病日に神経所見を再度確認したところ、C5レベル以下の神経所見であることに気づき、頸髄MRIを施行しC3～C5レベルで背側に著明な脊髄の圧排を伴う硬膜外血腫を認めた (Fig. 1D, E) ため、特発性脊髄硬膜外血腫と診断し、同日緊急で血腫除去術を施行した。術後、左上下肢にMMT 4の不全麻痺が残存したが生活動作はほぼ自立するまでに改善し、第18病日にmRS 2で自宅退院した。なお、後方視的には、来院時の造影CTで硬膜外血腫が確認できた (Fig. 1F)。

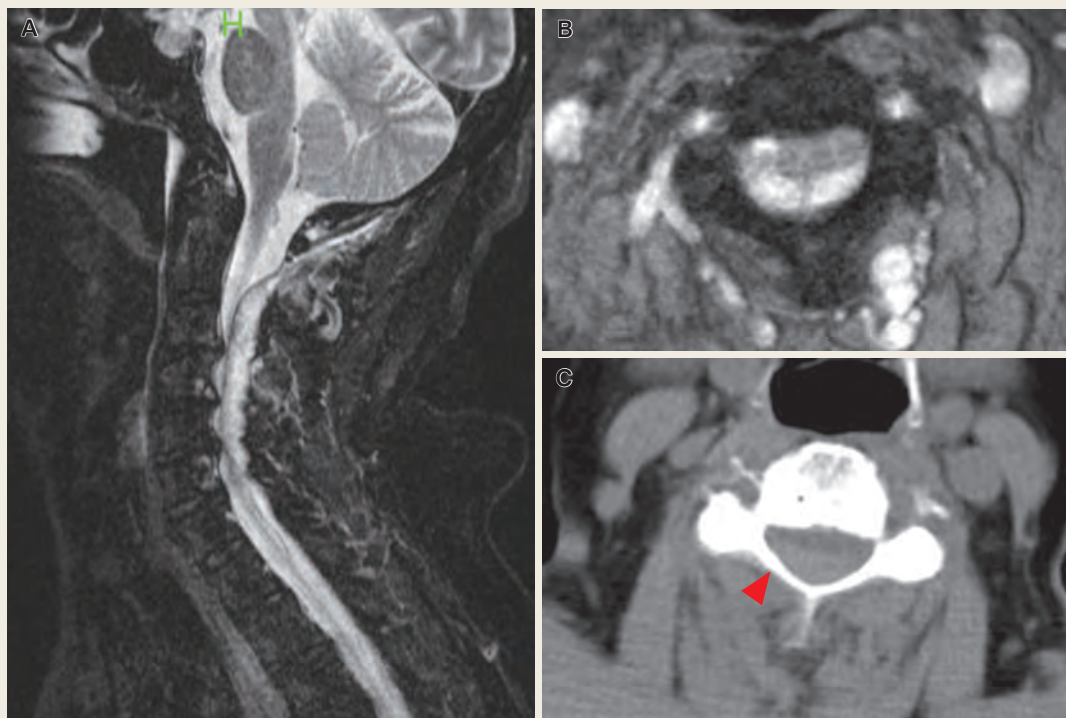
### 〈case 2〉 78歳女性.

**主 訴**：後頸部痛，右上下肢麻痺.

**既往歴**：高血圧症，糖尿病，骨粗鬆症.

**家族歴**：母；脳出血.

**現病歴・治療経過**：突然の後頸部痛，右半身不全麻痺のため，脳卒中疑いで発症から約1.5時間で当院に救急搬送された。意識清明で，表情筋運動や構音障害，僧帽筋運動など，脳神経系に明らかな異常なし，右上下肢完全麻痺と両側C4以下の温痛覚障害を認めた。病歴と神経所見から，脊髄硬膜外血腫が強く疑われたため，



**Fig. 2** Case 2

MRI shows spinal epidural hematoma in the dorsal of the spinal cord at the C3-C6 level (A). It showed high intensity on STIR (A) and T2-weighted image (B). Neck CTA shows spinal epidural hematoma as a slightly high-density mass (C) (red arrow).

通常の脳卒中プロトコルを変更して、頭部および頸椎のCT並びにMRIの評価を行った。頭部単純CTでは頭蓋内出血や早期脳虚血性変化は認めず、頸椎CTでは脊髄硬膜外腔に血腫を認めた。頭部MRIでは拡散強調画像、急性期虚血性変化は認めず (Fig. 2A～C)、続いて頸椎MRIではC3～6Cに硬膜外血腫を認め、特発性脊髄硬膜外血腫と診断し、同日緊急で血腫除去を施行した。術後右半身麻痺はMMT 4程度まで改善し、第15病日にmRS 2で自宅退院した。

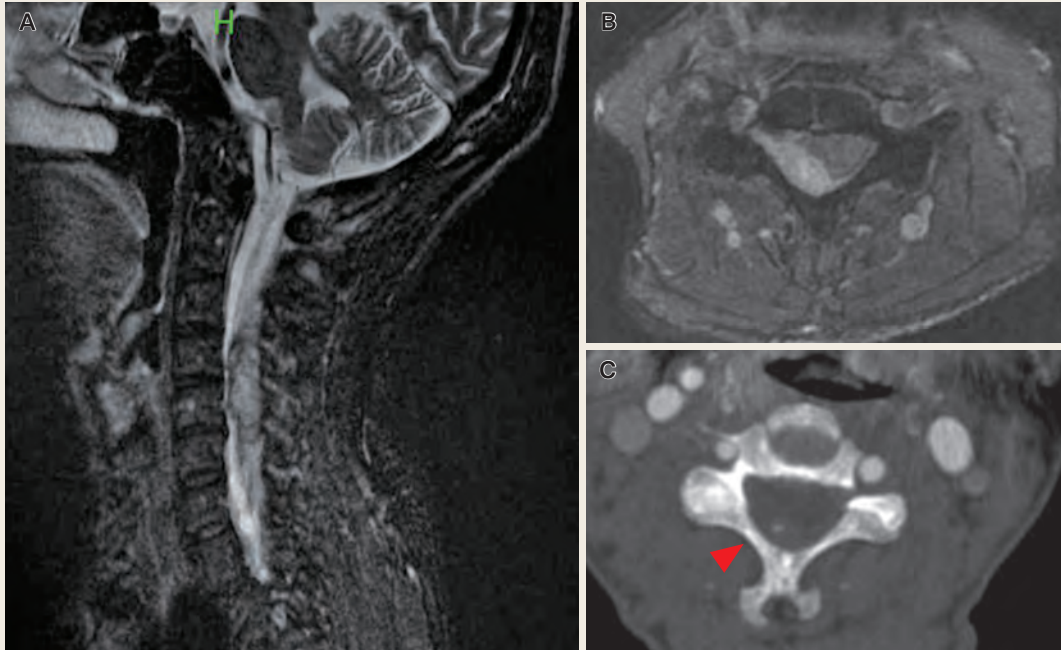
#### 〈case 5〉 61 歳女性.

**主 訴**：右頸部痛，右上下肢麻痺.

**既往歴**：高血圧症，逆流性食道炎.

**家族歴**：特記事項なし.

**現病歴・治療経過**：突然の右頸部痛と右上下肢麻痺を認め、発症から約1時間で当院に脳卒中疑いで救急搬送された。来院時、意識清明で、表情筋運動や構音障害、僧帽筋運動など脳神経系に明らかな異常はなく、右半身上の腕二頭筋以下にMMT 1～3の麻痺を認めた。明らかな温痛覚障害は認めなかった。頭部CT、CTA、



**Fig. 3** Case 5

MRI shows spinal epidural hematoma in the dorsal of the spinal cord at the C3-C7 level (A). It showed high intensity on STIR (A) and T2-weighted image (B). Neck CTA shows spinal epidural hematoma as an iso-density mass with a high-density spot (C) (red arrow).

CTP では、早期虚血性変化や主幹動脈の閉塞、血流低下は認めなかった (Fig. 3A ~ C) が、CTA の頸部画像で C3 ~ 6C の脊柱管内に造影剤の漏出を伴う硬膜外血腫を認めた。頸椎 MRI では C3 ~ 6C に硬膜外血腫を認め、同日緊急で血腫除去術を施行した。術後は自力歩行可能となり、第 16 病日に mRS 1 で自宅退院した。

## V. 考 察

特発性脊髄硬膜外血腫の年間発症率は 1 人 / 100 万人とまれな疾患で<sup>2)</sup>、硬膜外静脈叢の破綻が原因と考えられている<sup>3)</sup>。好発部位は頸椎から上位胸椎であり、特に下位頸椎に多いとされる<sup>3)</sup>。症状としては突然の後頸部痛や背部痛に続き、四肢麻痺、感覚障害、膀胱直腸障害などを呈するとされるが<sup>1)</sup>、その初期症状として片麻痺を呈し、脳卒中との鑑別を要したとの報告も少なくない<sup>3-13)</sup>。脳梗塞の鑑別において発症初期に頸部痛もしくは背部痛を伴うこと、脳神経系に異常を認めないことが重要である<sup>4)</sup>。これは特発性脊髄硬膜外血腫が主に下位頸椎に好発し<sup>3)</sup>、脳神経に障害をきたしにくいためと考えられている。

これまでに片麻痺を呈した脊髄硬膜外血腫については 30 例以上の症例報告<sup>3-13)</sup>があるが、初期症状として脳神経系の異常を示唆する所見を呈していたとされるも

のは2例あった。いずれも構音障害で、1例は入れ歯を外した影響<sup>6)</sup>が疑われ、もう1例は特に詳細な考察はなかった<sup>7)</sup>。自験例では特に表情筋運動と僧帽筋運動について注目しており、いずれも異常は認めない点が共通していた。表情筋運動と僧帽筋運動についてはその評価が比較的容易かつ客観的であり、これまでにこれらの異常を呈したとの報告もないことから、脳卒中との鑑別においては診断的価値が非常に高いと考えられる。

また、時間経過とともに四肢麻痺を呈した症例<sup>5, 8)</sup>もあり、診察中に四肢麻痺へ移行した場合には当疾患を疑い、速やかに頸髄の評価を行うことが重要である。自験例ではBrown-Séquard症候群やホルネル徴候を呈したものはなかったが、これらの症状は頸椎病変を積極的に疑う手掛かりとなり得る。自験例で初療時に診断がついた3例は、いずれも頸部痛に続いて出現した片麻痺のエピソードと脳神経系に異常を認めないという神経所見から本疾患を積極的に疑ったことが早期診断につながった。逆に脳梗塞と誤診された4例では、初療時の神経診察が不十分で、脳卒中中の鑑別として本疾患が想起されていなかった可能性は否めない。脳梗塞加療開始後のフォローアップのMRIでも脳梗塞が認められないにもかかわらず麻痺症状が持続していたことから、神経所見を再評価し、頭蓋外病変を検索したことで、結果的に特発性脊髄硬膜外血腫の診断に至った。

画像検査において自験例では6例が後方視的にCTでの診断も可能であったが、1例(case 3)は血腫と脊髄がほぼ等吸収で境界も不明瞭でありCT単独での診断は困難であった。またMRA原画像においても診断が可能であったとの報告<sup>9)</sup>もある。脊髄硬膜外血腫の診断ではMRIが最も有効であるが、脳卒中診療において、頸部を含めた3D-CTA、MRAが撮影されることも多く、これらの画像の頸椎レベルを確認することで早期診断につながる可能性がある。

治療は、発症から血腫の増大がなく、自然消退する例もあることから、麻痺が軽度な症例や早期に麻痺の改善がみられる症例では保存加療が選択される。神経症状が改善されない、または進行する例では手術加療が選択される。

手術のタイミングについては発症から12時間以内に手術を行えば機能予後がよく<sup>14)</sup>、48時間を超えると機能予後が不良との報告<sup>15)</sup>もあるが、自験例では脳卒中と誤診された4例は確定診断までに32時間以上経過していた。2例は継時的に症状が改善傾向であったため保存加療を選択し、残りの2例はMMT 3以下の比較的強い麻痺を認めていたため手術加療が選択された。いずれも不全麻痺など後遺症が残存した。特に発症から診断まで32時間を要したcase 3では術前に右上下肢MMT 1の麻痺があり、術後は右上肢MMT 4、右下肢MMT 2とやや改善は認め

**Table 2** Reported cases of spontaneous spinal epidural hematoma (SSEH) treated with rt-PA

case	Age (years)	Sex (M/F)	initial presentation	neurological change after rt-PA treatment	hours to diagnosis of SSEH	treatment for SSEH	outcome	location of hematoma
			chief complaint					
Okada (2012)	49	F	left hemiparesis	none	6h	surgery	complete recovery	C1-Th2 lt posteriolateral
Son (2012)	63	M	left hemiparesis, neck and shoulder pain, dysarthria	none	3.5h	surgery	moderately disabled	C4-Th2 lt posteriolateral
Youter (2013)	69	F	left hemiparesis	worsening	unknown	surgery	good recovery	C1-Th1 lt posteriolateral
Hara (2014)	68	M	right hemiparesis, neck and back pain	none	93h	conservative	complete recovery	C1-C7 lt posteriolateral
Morimoto (2016)	71	M	left hemiparesis, neck pain	worsening	4h	surgery	moderately disabled	C4-C6 lt posteriolateral
Patel (2018)	51	M	right hemiparesis, neck pain	worsening	24h	surgery	incomplete recovery	C3-C5 rt posteriolateral
Shimada (2018)	76	M	right hemiparesis, shoulder pain	none	unknown	conservative	good recovery	C3-C4 rt posteriolateral
Teles (2020)	63	F	right hemiparesis, neck and shoulder pain	worsening	48h	surgery	incomplete recovery	C3-C6 rt posteriolateral
Watanabe (2020)	60	F	right hemiparesis, shoulder pain	worsening	5h	surgery	good recovery	C3-C6 rt posteriolateral
Our case 1	51	F	right hemiparesis, neck pain	none	48h	surgery	good recovery	C5-C6 rt posteriolateral
Our case 4	61	M	right hemiparesis, neck pain	none	63h	conservative	good recovery	C2-C6 rt posteriolateral

たものの、下肢にやや強い麻痺が残存し mRS 4 で退院しており、診断と手術開始の遅れから機能予後に影響を及ぼした可能性は否定できない。さらに rt-PA、抗血小板薬、抗凝固薬が使用された場合、術中出血リスクが高まる恐れもある。rt-PA が投与された症例の報告はこれまでに収集し得た限りで自験例を含め 11 例<sup>3-6, 8, 10-13)</sup>あり、そのうち 5 例は rt-PA 投与後に症状の増悪を認めていた<sup>4, 5, 8, 10, 13)</sup> (Table 2)。当院では片麻痺発症の特発性脊髄硬膜外血腫に対する rt-PA 投与を経験し、再発防止のため、特に疼痛の有無と神経診察（表情筋および僧帽筋運動）をより意識して行うこととしている。

## VI. 結 語

特発性脊髄硬膜外血腫は頸椎で発症すると片麻痺を呈することがあり、脳梗塞との鑑別が重要である。脳梗塞と誤診された脊髄硬膜外血腫の報告例の約 3 割が rt-PA 静注療法にかかわるものであることから当疾患の周知は未だ十分とは言えない。rt-PA の禁忌および慎重投与項目には本疾患の記載はないが、脳梗塞治療にあたっては本疾患を常に念頭に置き、神経所見と画像所見を評価する必要がある。

## 文献

---

- 1) Groen RJ, van Alphen HA: Operative treatment of spontaneous spinal epidural hematomas: a study of the factors determining postoperative outcome. *Neurosurgery* 39: 494-508, 1996
- 2) Holtás S, et al: Spontaneous spinal epidural hematoma: findings at MR imaging and clinical correlation. *Radiology* 199: 409-13, 1996
- 3) 原 直之, 他: 特発性脊髄硬膜外血腫の16症例の臨床分析—脳卒中との類似点を中心に—. *臨床神経* 54: 395-402, 2014
- 4) Patel R, et al: Hemiparesis in spontaneous spinal epidural haematoma: a potential stroke imitator. *BMJ Case Rep* 26: bcr2017222686, 2018
- 5) 渡邊瑞也, 他: 脳梗塞と診断された特発性脊髄硬膜外血腫の分析—抗血栓療法が行われた症例を中心に—. *Neurological Surgery 脳神経外科* 48: 683-90, 2020
- 6) Son S, et al: A case of spontaneous spinal epidural hematoma mimicking a stroke. *Neurologist* 18: 41-3, 2012
- 7) Inatomi Y, et al: Spinal epidural hematoma as a stroke mimic. *J Stroke Cerebrovasc Dis* 29: 105030, 2020
- 8) Morimoto T, et al: Worsening Cervical Epidural Hematoma After Tissue Plasminogen Activator Administration for Stroke Like Symptoms. *Spine (Phila Pa 1976)* 41: E437-40, 2016
- 9) Ueba Y, et al: [Two cases of spontaneous cervical epidural hematoma mimicking cerebral infarction] . *No Shinkei Geka* 42: 143-8, 2014
- 10) Teles P, et al: A spontaneous cervical epidural hematoma mimicking a stroke - A case report. *Surg Neurol Int* 11: 157, 2020
- 11) Okada E, et al: A case of spontaneous spinal epidural hematoma that mimicked acute cerebral ischemic stroke and was treated by a recombinant tissue-type plasminogen activator. *Neurosurgery Quarterly* 22: 99-101, 2012
- 12) 島田英二郎, 他: 脳梗塞の診断で血栓溶解療法を施行された頸髄特発性硬膜外血腫の1例. *整形外科と災害外科* 67: 523-6, 2018
- 13) Youter A, Kaloostian PE: Spontaneous Cervical Epidural Hematoma Mimicking Stroke: A New Perspective on Diagnosis and Treatment. *Open Journal of Modern Neurosurgery* 3: 59-62, 2013
- 14) Liao CC, et al: Experience in the surgical management of spontaneous spinal epidural hematoma. *J Neurosurg* 100: 38-45, 2004
- 15) Liao CC, et al: Surgical treatment of spontaneous spinal epidural hematoma: a 5-year experience. *J Neurosurg Spine* 11: 480-6, 2009