頸部回旋により両側頭蓋外椎骨動脈解離を来して発症した bow hunter 症候群の 1 例

渡部 真志¹⁾ 二宮 怜子^{1,2)} 近藤 総一^{1,3)} 鴨川 賢二^{1,4)}
 富田 仁美^{1,5)} 藤原 聡⁶⁾ 奥田 文悟⁷⁾ 岡本 憲省¹⁾

要旨：症例は 41 歳男性。習慣的に行っていた頸部回旋直後に後頸部痛を自覚した後、ふらつき、呂律困難、右半身の脱力が順に出現した。意識は JCS 1 で、右同名半盲、構音障害、右片麻痺、左上下肢の運動失調がみられた。頭部 MRI、DWI で左小脳と左視床内側に急性期脳梗塞を認めた。頭頸部 MRA ならびに造影 CT にて右椎骨動脈解離による動脈原性塞栓症と診断した。脳血管撮影では左回旋位で右椎骨動脈の血流の途絶がみられた。撮影中、右頸部回旋時に後頸部痛を生じた。左椎骨動脈に狭窄性変化と右回旋位で血流の途絶を認めた。検査後から一過性の浮動感が出現した。翌日の頭部 MRA にて新たに左椎骨動脈解離を認めたため、両側椎骨動脈解離による bow hunter 症候群 (BHS) と診断した。抗血小板剤内服と頸部硬性カラー装着にて BHS に関連する症状は速やかに改善した。頭蓋頸椎移行部における椎骨動脈解離を疑って脳血管撮影を行う際には、頸部回旋により新たな動脈解離を来す恐れがあることに最大限の注意を払うべきと考える。

Key words: extracranial vertebral artery dissection, bow hunter's syndrome, neck rotation, craniovertebral junction

はじめに

本邦における若年性脳梗塞では、アテローム血栓性、心原性、ラクナ以外の原因によるものが全体の約 1/4 を占め、その原因としては脳動脈解離が多いとされている¹⁾。Bow hunter 症候群 (以下、BHS) とは、頭位変換による椎骨脳底動脈領域の循環不全がおこり、めまいや意識障害、感覚障害などの症状を来す稀な病態である²⁾。今回我々は BHS を呈した両側頭蓋外椎骨動脈解離の 1 例を経験したので、その発症機序を中心に考察を加えて報告する。

症 例

患者：41 歳、男性

主訴：後頸部痛、ふらつき、呂律困難、右片麻痺

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

内服歴：特記事項なし

生活歴：喫煙 20 代に 10 本/日 × 5 年、飲酒 ビール 350 ml/週、職業 調理師。

現病歴：普段から後頸部の凝りが強く、習慣的に頸部回旋運動を行っていた。起床時に普段通りに頸部回旋運動を行った直後から後頸部痛を自覚した。その後、ふらつき、呂律困難、右半身の脱力が順に出現したため救急病院に搬送された。頭部 MRI で左小脳に急性期脳梗塞を認めた。画像所見上、右片麻痺に関連した病変は認められなかったが、神経症状・所見からは後方循環領域のより広範な脳虚血発作が生じた可能性が高いと判断されたため、精査目的で当院へ搬送された。

来院時現症：身長 170 cm、体重 84 kg、体温 37.1 度、血圧 159/80 mmHg、心拍数 51 回/分で不整脈はなかった。一般身体所見では、皮膚の過伸展や関節可動域の亢

¹⁾愛媛県立中央病院脳神経内科

²⁾現 住友病院脳神経内科

³⁾現 栃木県立リハビリテーションセンター神経内科

⁴⁾現 愛媛県立今治病院脳神経内科

⁵⁾現 おおぞら病院脳神経内科

⁶⁾愛媛県立中央病院脳神経外科

⁷⁾福角病院神経内科

責任著者：〒790-0024 愛媛県松山市春日町 83

愛媛県立中央病院脳神経内科 渡部真志

E-mail: natural_mw_stream@yahoo.co.jp

(2019 年 2 月 6 日受付, 2019 年 12 月 9 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10714

Fig. 1 頭部 MRI/MRA, 頭頸部 3D-CT angiography (A : 入院時頭部 MRI DWI, B : 第 2 病日頭部 MRI DWI, C : 第 2 病日頭頸部 MRA, D : 第 2 病日頭部 MRA axial source image, E : 第 2 病日造影 CT)

A, B : 左視床・小脳に急性期脳梗塞がみられた。
C, D : 右 V3 遠位に double-rumen 像を伴う偽腔による狭窄を認めた(矢印)。左側には動脈解離を示唆する所見はみられなかった。
E : 狭窄に一致して淡い造影効果を伴う偽腔を認めた(矢印)。

進はみられなかった。意識は JCS 1 で、右同名半盲、右中枢性顔面神経麻痺、上肢優位の右不全片麻痺、左上下肢の小脳性運動失調症を認めた。感覚系では、表在覚、深部覚ともに異常はなかった。四肢腱反射は正常であったが、Chaddock 反射が右側で陽性であった。

入院時検査：血液検査では、血算・生化学検査は全て正常であり、耐糖能異常や脂質異常もみられなかった。血液凝固能異常はなく、BNP は測定感度以下であった。甲状腺機能は正常で、MPO-ANCA, PR3-ANCA, 抗カルジオリピン IgG, 抗 CL-β2GP1 抗体、ループスアンチコアグラントは陰性であった。髄液検査では、蛋白が 48 mg/dl と軽度上昇していた。頭部 CT では特記すべき異常はなかった。頭部 MRI では拡散強調像にて左視床と左小脳半球に高信号病変がみられた(Fig. 1A, B)。通常の頭頸部 MRA では撮像範囲内に有意な血管病変は認められなかった。

入院後経過：病歴と症状、脳梗塞巣の分布から、椎骨動脈解離による脳梗塞を強く疑った。第 2 病日に頭部 MRA の撮像範囲を近位側まで拡大して再検したところ、右椎骨動脈において C1 横突起から頭蓋内進入部で壁不整が認められ(Fig. 1C)、同部位の axial source image で double-rumen 像が認められた(Fig. 1D)。頭頸部 3D-CT angiography では、MRA で認められた狭窄部位に偽腔と考えられる淡い造影効果を伴った血管壁肥厚と血管内腔の狭小化がみられたことから(Fig. 1E)、今回の多発性脳梗塞は右椎骨動脈解離による動脈原性脳塞栓症と判断した。脳梗塞に対して、アルガトロバン、エダラボン、アスピリン、クロピドグレルで治療を開始した。第

3 病日にアルガトロバンからヘパリン持続点滴に切り替え、抗血小板剤はクロピドグレルの内服のみとした。神経症状は速やかに改善し、第 2 病日からは軽微な右不全片麻痺のみとなり、ADL はほぼ自立状態となった。第 14 病日の脳血管撮影では、右椎骨動脈造影において頸部正中位で既知の狭窄像がみられ(Fig. 2A)、頸部の左回旋によって血流の途絶像が確認された(Fig. 2B)。内頸動脈造影では両側共に胎児型循環の所見はなかった。検査中に頸部を右に回旋した際に激しい後頸部痛を認めた。直後の左椎骨動脈造影にて右側と同じ高さに狭窄像を認め(Fig. 2C)、頸部の右回旋にて血流の途絶が認められた(Fig. 2D)。撮影後から一過性の浮動感が出現し、頸部回旋時に浮動感の再現性がみられた。第 15 病日に頭部 MRI を再検したところ、新たな脳梗塞はなかったが、頭頸部 MRA では左椎骨動脈が描出不良で(Fig. 3A)、axial source image で新たに double-lumen 像が確認された(Fig. 3B)。その後も頸部回旋時に浮動感が再現することから、両側椎骨動脈解離により BHS を発症したものと判断した。動脈解離の進展予防のため、降圧剤の内服とフィラデルフィアカラーによる頸部固定を行った。その後、脳梗塞の再発や動脈解離の増悪を疑わせる症状はみられなかった。第 21 病日の頭頸部 3D-CT angiography では、頸椎 CT で明らかなアライメントの不整はなかったが(Fig. 4A)、両環椎横突起出口部や環椎上関節窩背側に骨棘形成による両椎骨動脈の圧排所見が確認された(Fig. 4B, C)。今後の動脈解離の再発予防のために椎骨動脈除圧術や頸椎固定術も検討したが、本人から手術療法への同意が得られず、保存的治療を継続し

Fig. 2 脳血管撮影〔第 14 病日 A：右椎骨動脈撮影(頸部正中位), B：右椎骨動脈撮影(頸部左回旋時), C：左椎骨動脈撮影(頸部正中位), D：左椎骨動脈撮影(頸部右回旋時)〕
 A：頭蓋頸椎移行部に既知の動脈解離を認めた(矢印).
 B：血流の途絶が確認された.
 C：頭蓋頸椎移行部に新たな動脈解離を疑う狭窄像を認めた(矢印).
 D：血流の途絶が確認された.

Fig. 3 脳血管撮影後の頭部 MRA (第 15 病日)
 頭部 MRA では左椎骨動脈が描出不良となっており、素画像で double-lumen 像が確認された.

Fig. 4 頸椎/後頭骨評価と椎骨動脈の関係 (A：頸椎 CT 矢状断, B：頸部造影 CT 環椎水平断, C：骨画像付き頭頸部 3D-CT angiography)
 A：頸椎の配列異常はなかった.
 B, C：環椎横突孔や上関節窩の骨棘で椎骨動脈が圧迫され狭窄を来した(矢印).

た。第 38 病日に独歩でリハビリ病院に転院した。

考 察

BHS は別名 rotational vertebral artery syndrome と呼ばれており、頸部が左右に 45 度以上回旋された際に、椎骨動脈が機械的圧迫を受けて椎骨脳底動脈領域に循環不全が生じ、めまいや意識障害、感覚障害などの症状を来す可逆性かつ一過性の稀な病態である³⁾。BHS を呈する血行動態の条件としては、両側椎骨動脈の血流障害と

内頸動脈系から後交通動脈を介する側副血行路が未発達であることが必要とされる⁴⁾。BHS の原因としては、変形性頸椎症による骨棘が最も多く⁵⁾、その他には、椎骨脳底動脈解離、環軸関節亜脱臼、周囲組織による圧迫、頭蓋頸椎移行部奇形、外傷、スポーツ、カイロプラクティック、腫瘍などがある^{6,7)}。椎骨動脈狭窄や閉塞は C1/2 レベルが有意に多いとされているが³⁾、C4/5、C5/6、C6/7 レベルでも報告されている^{8,9)}。これらは椎骨動脈が頸椎横突孔内を出入りする箇所、生理的狭窄

を生じやすい部位であり⁶⁾、C1/2 では頸部回旋方向と逆側に^{10, 11)}、C4/5/6/7 では同側に^{8, 9)}狭窄を呈するとされる。症状としては、回転性眩暈(28%)と失神(26%)が最も多いが、視野障害(11%)、浮動性眩暈(10%)、複視、耳鳴り、嘔気・嘔吐、神経巣症状を伴う例もある⁵⁾。

本例では、両環椎横突起出口部や環椎上関節窩背側に存在した骨棘によって両側の椎骨動脈が圧排され、そこに頸部回旋運動が加わったことで両側椎骨動脈解離を発症したものと考えられた。頭蓋頸椎移行部で BHS を発症した例は非常に少ない。Jost らは、BHS 126 例の報告を review しているが、同部位の動脈解離によって BHS を発症した例はわずか 3 例(2%)であり、両側の椎骨動脈解離によるものは 1 例(0.8%)のみであった¹¹⁾。頻度が低い理由として、同部位は通常の MRA 検査では撮影範囲に含まれないため、動脈解離が見逃されている可能性が考えられる。椎骨動脈病変を見落としなく検出するためには、より近位側まで撮影範囲を拡大して検査を行うことが重要である。また、本例のように頭蓋頸椎移行部における椎骨動脈解離を疑う場合、脳血管撮影時において、頸部回旋により新たな動脈解離を来す恐れがあることに最大限に留意すべきと考える。

頭蓋頸椎移行部で椎骨動脈解離を発症した原因として、①椎骨動脈の走行異常、②環椎形態異常、③後頭骨と環椎の位置関係のずれ、の 3 つの可能性を推測した。画像検査で①②を示唆する所見は認められなかった。③に関しては、調理師という職業上の特性から、長時間頭長筋が過剰に収縮することによって後頭骨の前方偏位と後頭下筋群の過伸展が生じ、それを解消するために習慣的に頸部の回旋運動を行っていたことが推測される。この回旋運動の反復によって骨棘や後環椎後頭膜の増殖や肥厚^{12, 13)}を生じ、椎骨動脈とそれに併走する後頭下神経を圧迫した結果、後頸部筋群(大・小後頭直筋、上・下頭斜筋、外側頭直筋、頭半棘筋)の運動障害を生じて、後頸部の筋緊張を更に増悪していた可能性が示唆された。

BHS を呈する椎骨動脈解離の治療として、頸椎カラー装着や過度の頸部回旋の自粛と頸部の安静保持、アスピリン内服等の抗血栓療法、手術療法がある。過去に多症例報告による検討では、保存的治療を選択した場合は予後良好群が 37%であったのに対して、手術療法を行った場合には 83%であったと有意差が示されている⁵⁾。保存的治療を選択した例として、カイロプラクティックによる過度の頸部回旋時のみ症状が出現した例¹⁴⁾や、片側の椎骨動脈解離により BHS を呈したものの再開通により症状が消失した例¹⁵⁾などが報告されている。保存的治療のうち臨床経過を追跡しえたのは 3 例の

みで、頸椎カラー装着とアスピリン内服で加療した 1 例では、頸椎カラーを中止すると症状の再燃が繰り返し出現した¹⁶⁾。他の 2 例では頸部回旋の自粛が不十分であり、後日手術療法が選択されていた^{17, 18)}。本例では患者の同意が得られていないため、現時点では保存的加療を選択しているが、症状の再増悪がみられた場合には手術療法を検討する必要がある。更に、骨棘による両側椎骨動脈の圧迫に加えて血管自体にも狭窄性変化が残存し、頸部の回旋により反対側の椎骨動脈の狭窄部位で血流途絶がみられることから、椎骨動脈除圧術と頸椎固定術の併用が望まれる。

結 語

BHS を呈した頭蓋頸椎移行部における両側頭蓋外椎骨動脈解離の稀な 1 例を報告した。頭蓋頸椎移行部における椎骨動脈解離を疑って脳血管造影を行う際には、頸部回旋により新たな動脈解離を来す恐れがあることに最大限の注意を払うべきと考える。

※本論旨は第 117 回内科学会四国地方会(平成 29 年 12 月、香川)で発表した。

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) 峰松一夫, 矢坂正弘, 米原敏郎ら: 若年者脳卒中診療の現状に関する共同調査研究, 若年者脳卒中共同調査グループ(SASSY-JAPAN). 脳卒中 26: 331-339, 2004
- 2) Sorensen BF: Bow hunter's stroke. Neurosurgery 2: 259-261, 1978
- 3) Horowitz M, Jovin T, Balzar J, et al: Bow hunter's syndrome in the setting of contralateral vertebral artery stenosis: evaluation and treatment options. Spine 27: E495-498, 2002
- 4) 林健太郎, 松尾孝之, 栗原正紀ら: 若年性 Bow hunter's stroke の 1 例. 脳と神経 52: 431-434, 2000
- 5) Rastogi V, Rawls A, Moore O, et al: Rare etiology of Bow Hunter's syndrome and systematic review of literature. J Vasc Interv Neurol 8: 7-16, 2015
- 6) 小阪崇幸, 荒木裕至, 幸崎弥之助ら: 狭窄部位および発症機序の同定に頸部血管エコーと 4D-CT angiography が有用であった bow hunter 症候群の 1 例. Neurosonology 26: 98-101, 2014
- 7) 長澤史朗, 大槻宏和: 失神発作で発症した第 2 頸神経神経鞘腫の 1 例. Neurol Surg 19: 589-593, 1991
- 8) Dargon PT, Liang CW, Kohal A, et al: Bilateral mechanical rotational vertebral artery occlusion. J Vasc Surg 58: 1076-1079, 2013
- 9) 田中将平, 稲富雄一郎, 米原敏郎ら: 自然軽快した bow hunter 症候群の 1 例. 臨神経 52: 34-37, 2012
- 10) Brown B ST J, Tatlow WF: Radiographic studies of the verte-

- bral arteries in cadavers. Effects of position and traction on the head. *Radiology* 81: 80–88, 1963
- 11) Jost GF, Dailey AT. Bow hunter's syndrome revisited: 2 new cases and literature review of 124 cases. *Neurosurg Focus* 38 Issue 4: E7, 2015
 - 12) Sakai K, Tsutsui T: Bow hunter's stroke associated with atlanto-occipital assimilation--case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 39: 696–700, 1999
 - 13) Shimizu T, Waga S, Kojima T, et al: Decompression of the vertebral artery for bow-hunter's stroke. Case report. *J Neurosurg* 69: 127–131, 1988
 - 14) Dabus G, Gerstle RJ, Parsons M, et al: Rotational vertebrobasilar insufficiency due to dynamic compression of the dominant vertebral artery by the thyroid cartilage and occlusion of the contralateral vertebral artery at C1-2 level. *J Neuroimaging* 18: 184–187, 2008
 - 15) Wakayama K, Murakami M, Suzuki M, et al: Ischemic symptoms induced by occlusion of the unilateral vertebral artery with head rotation together with contralateral vertebral artery dissection--case report. *J Neurol Sci* 236: 87–90, 2005
 - 16) Robinson BP, Seeger JF, Zak SM: Rheumatoid arthritis and positional vertebrobasilar insufficiency. Case report. *J Neurosurg* 65: 111–114, 1986
 - 17) Fox MW, Piepgras DG, Bartleson JD: Anterolateral decompression of the atlantoaxial vertebral artery for symptomatic positional occlusion of the vertebral artery. Case report. *J Neurosurg* 83: 737–740, 1995
 - 18) Gortvai P: Insufficiency of vertebral artery treated by decompression of its cervical part. *Br Med J* 2: 233–234, 1964

Abstract

A case of bow hunter's syndrome due to bilateral extracranial vertebral artery dissection in the craniovertebral junction caused by neck rotation

Masashi Watanabe, M.D.,¹⁾ Satoko Ninomiya, M.D.,^{1,2)} Soichi Kondo, M.D.,^{1,3)} Kenji Kamogawa, M.D.,^{1,4)} Hitomi Tomita, M.D.,^{1,5)} Satoshi Fujiwara, M.D.,⁶⁾ Bungo Okuda, M.D., Ph.D.,⁷⁾ and Kensho Okamoto, M.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Ehime Prefectural Central Hospital

²⁾Present address: Department of Neurology, Sumitomo Hospital

³⁾Present address: Department of Neurology, Tochigi Prefectural Rehabilitation Center

⁴⁾Present address: Department of Neurology, Ehime Prefectural Imabari Hospital

⁵⁾Present address: Department of Neurology, Oozora Hospital

⁶⁾Department of Neurosurgery, Ehime Prefectural Central Hospital

⁷⁾Department of Neurology, Fukuzumi Hospital

A 41-year-old man was transferred to our hospital because of sudden nuchal pain just after habitual head rotation, followed by dizziness, speech disturbance, and weakness of right half body. On admission, he had mild consciousness disturbance, right homonymous hemianopsia, dysarthria, right hemiparesis, and cerebellar ataxia in the left upper and lower limbs. Brain MRI showed multiple high intensity lesions in the left cerebellum and left medial thalamus on diffusion-weighted image. Cervical MRA and CT angiography showed right extracranial vertebral artery dissection. We diagnosed him artery-to-artery embolisms due to vertebral artery dissection. Vertebral angiography revealed interruption in-flow of the right vertebral artery on head rotation to the left side. He complained of new nuchal pain on head rotation to the right side under examination. Stenotic changes and flow interruption on head rotation to the right side in the left vertebral artery was newly documented on the angiography. Subsequently, he complained of transient dizziness. On the following day, we diagnosed bow hunter's syndrome due to bilateral extracranial vertebral artery dissection based on the detection of additional left vertebral artery dissection on MRA. Treatment with antiplatelet and cervical hard collar fixation improved his symptoms immediately and did not lead to any ischemic events. We should pay close attention to the incidence of new vertebral artery dissection caused by neck rotation when we perform an angiography to investigate extracranial vertebral artery dissection in the craniovertebral junction.

Key words: extracranial vertebral artery dissection, bow hunter's syndrome, neck rotation, craniovertebral junction