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

小阪 崇幸¹⁾, 荒木 裕至²⁾, 幸崎 弥之助¹⁾, 田北 智裕¹⁾, 俵 哲¹⁾, 浅尾 千秋²⁾, 吉松 俊治²⁾

¹⁾ 国立病院機構熊本医療センター 神経内科

²⁾ 国立病院機構熊本医療センター 放射線科

Bow hunter's syndrome: Usefulness of carotid ultrasonography and four-dimensional CT angiography

Takayuki KOSAKA¹⁾, Yuushi ARAKI²⁾, Yanosuke KOUZAKI¹⁾, Tomohiro TAKITA¹⁾, Satoru TAWARA¹⁾, Chiaki ASAO²⁾, Shunji YOSHIMATSU²⁾

¹⁾ Departments of Neurology, National Hospital Organization Kumamoto Medical Center

²⁾ Departments of Radiology, National Hospital Organization Kumamoto Medical Center

Bow hunter's syndrome (BHS) is a rare condition resulting from mechanical occlusion or stenosis of the vertebral artery (VA) during head rotation. We report herein a case of BHS in a 54-year-old woman who complained of dizziness, paresthesia, and weakness of the right extremities on rotation of the head by $\geq 60^\circ$ to the right. Cervical radiography, magnetic resonance (MR) imaging, MR angiography and carotid Doppler ultrasonography of the neck in the neutral position revealed no abnormality. After rightward rotation of the head by 60° , end-diastolic flow in the left VA disappeared and peak systolic velocity gradually decreased. We diagnosed BHS and treated the patient conservatively. Four-dimensional computed tomography (CT) angiography proved that symptoms were attributable to severe mechanical compression with stenosis of the left VA at the C1-C2 level during rightward rotation of the head. Four-dimensional CT angiography is sufficiently effective for evaluation of hemodynamics and anatomical correlations with surrounding organs. For diagnosis of BHS, intra-arterial digital subtraction angiography (IA-DSA) is undoubtedly the gold standard; however, unlike CT angiography, IA-DSA is an invasive method. To the best of our knowledge, this represents the first report describing the usefulness of four-dimensional CT angiography for diagnosis of this uncommon condition.

Keywords: bow hunter's syndrome, four-dimensional CT angiography, carotid ultrasonography

(Received October 7, 2013; Accepted December 3, 2013)

はじめに

Bow hunter 症候群 (bow hunter's syndrome, BHS) は、首を回旋させることで椎骨脳底動脈領域の循環不全が起こり、めまいや脱力、感覚障害などをきたす病態である¹²⁾。従来は脳血管撮影 (intra arterial digital subtraction angiography, IA-DSA) により初めて診断がなされてきたが、近年では超音波検査によって発見、診断されることも多くなってきた^{5,8-11)}。今回われわれは、four-

dimensional CT angiography (4D-CTA) を用いることで、狭窄部位の特定に加え血行力学的な発症機序の解明に有用であった BHS の 1 例を経験したので報告する。

症例報告

患者: 54 歳, 女性。

主訴: 一過性のめまい, 右上肢の脱力・しびれ。

既往歴: 交通事故 (8 年前), 突発性難聴 (1 年前, 右耳)。

生活歴: 喫煙 / 飲酒歴なし。

Reprint request

小阪崇幸: 〒860-0008 熊本市中央区二の丸 1 番 5 号 国立病院機構熊本医療センター 神経内科

Takayuki Kosaka: Department of Neurology, National Hospital Organization Kumamoto Medical Center, 1-5 Ninomaru, Chuo-ku, Kumamoto 860-0008, Japan

E-mail: hellokosaka@yahoo.co.jp, Tel: 096-353-6501, Fax: 096-325-2519

Fig. 1 Carotid Doppler ultrasonography of left vertebral artery

Left. The Doppler waveforms with the neck in the neutral position revealed no abnormality.

Right. The Doppler waveforms after rightward rotation of the head by 60 degrees showed marked flow velocity reduction with no end-diastolic flow velocity.

家族歴：特記事項なし。

現病歴：某日、夕食の支度時に急にふらつき、右上肢の脱力・しびれを自覚し、その後も同様の症状が右回旋時に間欠的に持続したため、3日後に当院神経内科に紹介受診となった。頭部MRIにて急性期脳梗塞を認めなかったため、さらに3日後の頸部血管エコーを予約し、帰宅した。

来院時現症：身長 158 cm、体重 58 kg、体温 36.6℃、上肢血圧は左右差なく 120/78 mmHg、脈拍 64/分・整、心雑音および血管雑音は聴取しなかった。

神経学的所見：意識清明、項部硬直なし。瞳孔（3 mm、3 mm）正円同大。対光反射（迅、迅）。眼振なし、眼球運動障害なし。顔面神経麻痺なし。右感音性難聴・耳鳴り（突発性難聴の後遺症）。運動麻痺なし。感覚障害なし。失調なし。歩行は正常であった。

検査所見：心電図や胸部X線写真は異常なし。血液検査では軽度の脂質異常を認める以外に異常はなかった。UA 5.2 mg/dL、随時血糖 98 mg/dL、HbA1c (JDS) 5.4%、TC 248 mg/dL、TG 83 mg/dL、HDL-C 73 mg/dL、LDL-C 142 mg/dL。

頭部MRI/MRA (neutral position)：脳幹や小脳を含め脳梗塞は認められず、両側椎骨動脈を含めた椎骨脳底動脈系の描出も良好だった。

頸部MRI/MRA、頸椎X線写真、頸椎3D-CT (neutral position)：環軸椎亜脱臼を含めた頸椎の変形や頸部の占拠性病変は認められず、両側椎骨動脈とも狭窄や閉塞は認められなかった。

頸部血管超音波検査：正面位では異常所見を認めなかったが、右 60°回旋位において左椎骨動脈 (vertebral artery, VA) を経時的に検査したところ、拡張期血流の消失および収縮期血流の漸減が認められた (Fig. 1)。1分

ほど経過した時点で、めまい、右上肢のしびれが出現するようになったため検査を中断し正面位に戻したところ、症状は消失し血流波形も正常化した。左回旋位では明らかな異常は認めなかった。

経過：右回旋時に反復性に出現する特徴的な臨床症状と頸部血管超音波検査所見より、BHSと診断した。外科的治療の適応を含めた治療方針決定のために、狭窄部位および発症機序の同定が必要と考えられた。IA-DSAの実施を検討したが、侵襲的な検査であることから患者の同意が得られなかったため、右回旋位での3D-CTAおよび4D-CTAを実施した。3D-CTAにて、C1-C2レベルにおける左VAの狭窄が確認された (Fig. 2A)。環椎が回旋することによって左VAがストレッチされ、軸椎横突起に押し付けられているような恰好となっていた (Fig. 2B)。4D-CTA早期相では左椎骨動脈の血流遅延に加えて末梢からの逆行性血流が認められた (Fig. 3A)。また、後期相においては3D-CTAにて認められた狭窄部に一致して欠損が認められた (Fig. 3B)。以上より、回旋に伴うC1-C2レベルでの機能的狭窄のために血行力学的な機序で、椎骨脳底動脈循環不全をきたしていることが確認できた。手術の適応を含めた外科的治療に関して、脊椎外科および脳神経外科と検討したうえで、患者と相談した結果、手術はしない方針となった。BHSの病態について十分説明したうえで、右回旋を避けるように生活指導するとともに、薬物治療としてアスピリン 100 mg/日、アトルバスタチン 5 mg/日の内服投与を開始した。頸椎カラーは装着しなかった。1年後には薬物投与も中止し回旋制限のみにて経過観察したが、症状が再発することはなかった。

Fig. 2 Three-dimensional enhanced computed tomography with the head rotated to the right

A. The left VA is stretched and occluded caused by dislodgment between C1 and C2 (arrow).

B. Schematic illustration of a lateral view of the cervical vertebrae and vertebral artery in the neutral position (upper panel) and with head rotation (lower panel). Entrapment of the vertebral artery by the anterior portion of the transverse process of the axis vertebra is caused by head rotation.

Fig. 3 Four-dimensional enhanced computed tomography with the head rotated to the right

A. In the early phase, left vertebral artery, showing delay and slowing of the anterograde flow (arrow) with retrograde flow of collateral circulation from the distal portion (arrow head).

B. In the late phase, left vertebral artery, showing obstruction of the left vertebral artery at the level of the C1-C2 (arrow).

考察

BHSは、首を回旋させた際に椎骨脳底動脈領域の虚血症状をきたす病態の総称であり、アーチェリーをした際に発症した脳幹梗塞の症例を bow hunter's stroke として1978年に Sorensen が報告したことに由来する。基礎疾患として椎骨脳底動脈解離、環軸椎亜脱臼、周囲組織による圧迫といった報告などがあるが、明らかな基礎疾患を有さない症例も多い。報告例の多くが欧米からではなくアジアからであることを考慮すると、人種間での骨

格の差による頸椎の解剖学的要素が影響していると推察される。狭窄部位の多くはC1/2レベルであるが、C5/6、C6/7レベルでも報告されており¹³⁾、これらは解剖学的にVAが頸椎横突孔を出入りし生理的な屈曲が認められる部位に一致する。

BHSの診断は回旋時の血流異常をIA-DSAにより確認することによってなされてきたが、画像技術の進歩により近年では超音波検査によって発見、診断されることも多くなってきた^{5,8-11)}。しかし、超音波検査では狭窄部位および発症機序の同定は困難であり、治療法の選択

をするうえでは責任血管の血管撮影が必須である。今回われわれは、従来の IA-DSA でなく 3D/4D-CTA を組み合わせることで、狭窄部位および発症機序を同定することができた。確かに CTA には IA-DSA と比較し、撮像範囲や造影剤の使用量などを検査中に細かく微調整することが困難な点や局所の血管評価における空間分解能が劣るといった欠点がある。一方で、動脈穿刺や血管内カテーテル操作に伴うリスク（出血、感染、塞栓症）がなく圧倒的に侵襲性が低いことや、頸椎を含めた周辺組織との視覚的な位置関係の描出が可能といった非常に大きな利点がある。今回われわれが文献を渉猟し得た限り、3D-CTA を診断に用いた報告はあるものの^{6,7)}、4D-CTA を用いて発症機序を同定した報告は認められなかった。画像機器の進歩、普及に伴い、今後も積極的に検討されるべき検査法と考えられた。

BHS に対する治療として、頸椎後方固定術、除圧術、ステント留置術などの外科的治療の報告がある^{1,2,4)}。一方、頸部回旋回避や内服薬投与などの保存的治療のみで良好な転帰を得られたとする報告も散見される^{3,13)}。本症例では、頭部 MRI において脳梗塞巣は認められなかったが、血液検査にて脂質異常症を認めたことからスタチン製剤と抗血小板薬を予防的に短期間投与した。BHS に対するコンセンサスの得られた薬物療法はなく、今後とも症例の蓄積が必要と考えられた。

結語

通常の頸部血管超音波検査にて頸部回旋時の血流障害を発見し、3D/4D-CTA にて狭窄部位および発症機序を同定できた BHS の 1 例を報告した。超音波検査や CTA はいずれも侵襲性の低い検査であり診断、治療方針の決定に有用であると考えられた。

本論文の要旨は動画を含め第 32 回日本脳神経超音波学会総会（2013 年、徳島）において発表した。

●文献

- 1) 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
- 2) 五味正憲, 服部伊太郎, 堀川文彦, 岩崎孝一: 血管内手術が奏功した bow hunter's stroke の 1 例. No Shinkei Geka 34: 189-192, 2006
- 3) 林健太郎, 松尾孝之, 栗原正紀, 柴田尚武: 若年性 Bow hunter's stroke の 1 例. 脳神経 52: 431-434, 2000
- 4) Hanakita J, Miyake H, Nagayasu S, Nishi S, Suzuki T: Angiographic examination and surgical treatment of bow hunter's stroke. Neurosurgery 23: 228-232, 1988
- 5) Jargiello T, Pietura R, Rakowski P, Szczerbo-Trojanowska M, Szajner M, Janczarek M: Power Doppler imaging in the evaluation of extracranial vertebral artery compression in patients with vertebrobasilar insufficiency. Eur J Ultrasound 8: 149-155, 1998
- 6) Matsuyama T, Morimoto T, Sakaki T: Bow hunter's stroke caused by a nondominant vertebral artery occlusion: case report. Neurosurgery 41: 1393-1395, 1997
- 7) Matsuyama T, Morimoto T, Sakaki T: Comparison of C1-2 posterior fusion and decompression of the vertebral artery in the treatment of bow hunter's stroke. J Neurosurg 86: 619-623, 1997
- 8) 西谷美智恵, 森野豊之, 松岡直輝, 野村栄一, 宮地隆史, 丸山博文, 郡山達男, 三森康世, 松本昌泰, 仲博満, 梶川博: 頸部血管超音波検査が診断に有用であった bow hunter's syndrome の 1 例. 日内会誌 93: 2424-2426, 2004
- 9) 永沢光, 山口佳剛, 山川達志: 大後頭窓からの経頭蓋カラー Doppler が診断に有用であった bow hunter 症候群の 1 例. Neurosonology 24: 7-11, 2011
- 10) 鈴木ひろみ, 本多正徳: 頸部血管超音波検査が有用であった頭蓋頸椎移行部奇形と椎骨動脈走行異常に伴う bow hunter's stroke の 1 例. Neurosonology 23: 17-22, 2010
- 11) Sakaguchi M, Kitagawa K, Hougaku H, Hashimoto H, Nagai Y, Yamagami H, Ohtsuki T, Oku N, Hashikawa K, Matsushita K, Matsumoto M, Hori M: Mechanical compression of the extracranial vertebral artery during neck rotation. Neurology 61: 845-847, 2003
- 12) Sorensen BF: Bow hunter's stroke. Neurosurgery 2: 259-261, 1978
- 13) 田中将平, 稲富雄一郎, 米原敏郎, 平野照之, 内野誠: 自然軽快した bow hunter 症候群の 1 例. 臨床神経 52: 34-37, 2012