

症例報告

頭部回旋により形成された解離性椎骨動脈瘤の瘤内血栓による artery-to-artery embolism を繰り返した Bow hunter's stroke の1例

福本 淳貴^{1)2)*}, 穂苅 万李子¹⁾²⁾, 坂田 佑輔¹⁾²⁾, 佐藤 晶¹⁾, 五十嵐 修一¹⁾, 森田 健一²⁾

1) 新潟市民病院脳神経内科

2) 新潟市民病院脳卒中科

要旨 : 症例は55歳女性。雪かき後に複視と後頭部痛が出現。第2頸椎レベルの右椎骨動脈に解離性動脈瘤を認め、後方循環系の脳梗塞を繰り返した。環軸椎亜脱臼があり、脳血管造影検査で頭部左回旋時の右椎骨動脈閉塞と右回旋時の左椎骨動脈狭窄を認めたため Bow hunter's stroke と診断した。頸椎カラー装着とアスピリン 100 mg 内服で脳梗塞再発なく経過したが、再発予防的に環椎軸椎後方固定術を施行した。術後6カ月でアスピリンを終了し、その後脳梗塞再発なく経過している。Bow hunter's stroke は希少な疾患であり、環椎軸椎後方固定術で良好な転帰を得られたため報告する。

Key words : Bow hunter's stroke, 解離性椎骨動脈瘤, 環軸椎亜脱臼, dynamic digital subtraction angiography, 環椎軸椎後方固定術

はじめに

Bow hunter's stroke は頭部回旋により椎骨動脈が圧迫され狭窄・閉塞し、椎骨脳底動脈系に脳梗塞をきたす病態であるが、診断が遅れることがしばしばある¹⁾。治療は、カラー装着による頸部安静や抗血栓薬による保存的加療が行われるが、虚血症状の発生予防が得られない場合は環椎軸椎後方固定術や椎骨動脈除圧術等の外科的治療、ステント留置術や母血管閉塞術等の血管内治療が行われる²⁾。我々は、環軸椎亜脱臼を背景に Bow hunter's stroke を繰り返し、環椎軸椎後方固定術で脳梗塞再発なく経過した症例を経験したので報告する。

症 例

症例 : 55歳, 女性

主訴 : 左側が見えにくい, 話しにくい, 右手が使いにくい, 左半身がしびれる

既往歴 : 虫垂炎, 胃癌, 子宮腺筋症。

現病歴 : 2021年1月, 雪かき後に後頭部痛と一過性の複視が生じた。近医を受診し, 頭部MRI/MRAで右小脳と右視床の急性期脳梗塞および第2頸椎(C2)レベルの右椎骨動脈に解離性動脈瘤を認めた(Fig. 1A~E)。解離瘤内に血栓と思われる欠損像を認めたため, artery-to-artery embolism による脳塞栓と考えられ, 総合病院へ入院, 当初抗血栓薬は使用されず降圧のみの保存的加療が行われた。入院6日目に構音障害と右手の巧緻運動障害, 7日目に左同名半盲が生じた。頭部MRIで右小脳と右後頭葉に新規脳梗塞がみられたため(Fig. 1F~I)アルガト

パンの持続静注が開始された。しかし, 8日目に構音障害の悪化と左半身の感覚障害が生じ, 頭部MRIで右後大脳動脈領域に脳梗塞再発を認めた。15日目に右後大脳動脈領域に脳梗塞再発を認めたため(Fig. 1J~M), 16日目に精査加療のため当院へ転院した。

入院時現症 : 一般身体所見は体温36.4°C, 血圧104/74 mmHg, 脈拍98回/分・整, SpO₂98% (室内気)で異常はなかった。神経学的には, 意識清明で, 左同名半盲, 断続性発語, 四肢筋緊張低下, 顔面を含む左半身の異常感覚, 四肢腱反射低下を認めた。頭頸部痛, 眼球運動障害, 複視, 顔面麻痺, 四肢の筋力低下, 病的反射, 四肢・体幹運動失調, 歩行障害, 膀胱直腸障害はなかった。

血液検査所見 : 血算, 生化学, 凝固能に異常はなかった。

経過 : 解離性椎骨動脈瘤がC2レベルであったため Bow hunter's stroke の可能性を考え, 頸椎カラー装着による頸部安静ならびにアスピリン100 mgの内服を行った。脳血管造影検査でC2レベルの右椎骨動脈に解離性動脈瘤を認めた(Fig. 2A~C)。瘤内血栓を疑う所見はみられなかったが, 頭部左回旋時の右椎骨動脈血流途絶と右回旋時のC2レベルにおける左椎骨動脈狭窄所見を認めた(Fig. 2D, E)。頸動脈エコー検査では, 頭部正中位における異常所見を認めなかったが, 頭部左回旋時の右椎骨動脈における peak systolic velocity (PSV) 低下および end-diastolic velocity (EDV) 消失と頭部右回旋時の左椎骨動脈における PSV 低下および EDV 消失を認めた(Fig. 3A~D)。また, 頸椎動態単純撮影により環軸椎亜脱臼を確認した(Fig. 4)。以上より, 環軸椎亜脱臼を背景として頭部回旋により右椎骨動

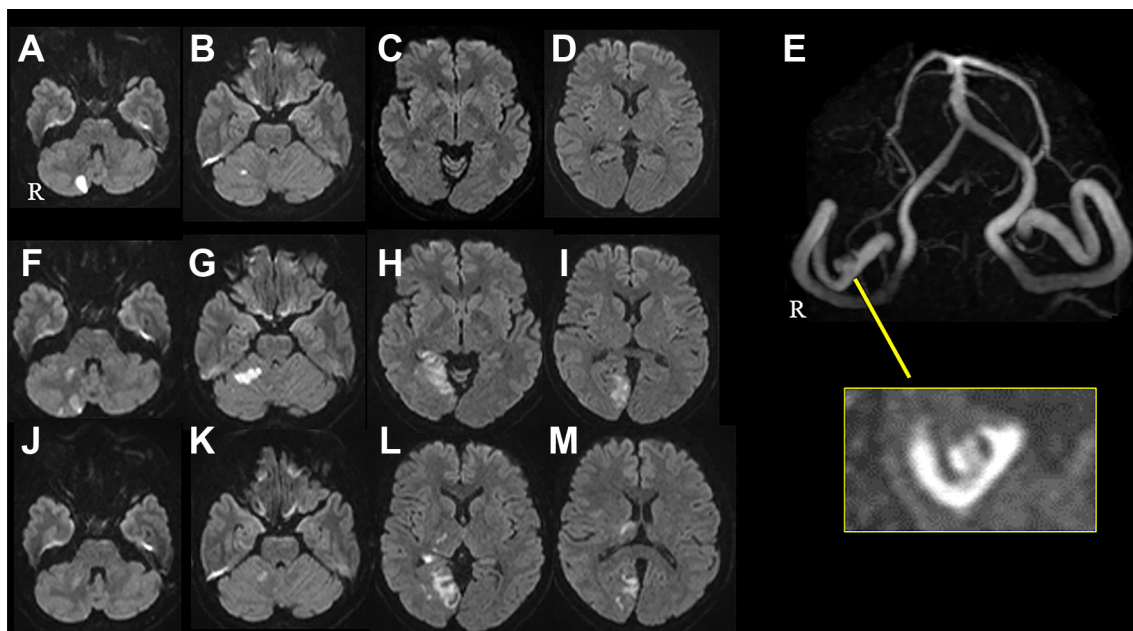


Fig. 1 Neuroradiological findings on days 1, 7 and 15.

MRI was conducted on admission in the previous hospital using a 1.5-T MRI scanner. Axial DWI (TR 7,800 ms, TE 80 ms, b-value 1,000 sec/mm²) shows high-intensity areas in the right cerebellum and the right thalamus (A–D), and MRA (Time of flight, TR 25 ms, TE 7 ms) shows the right vertebral artery dissecting aneurysm (E) on day 1. Axial DWI shows new high-intensity areas in the right cerebellum and the right occipital lobe (F–I) on day 7. Axial DWI shows new high-intensity areas in the right thalamus (J–M) on day 15.

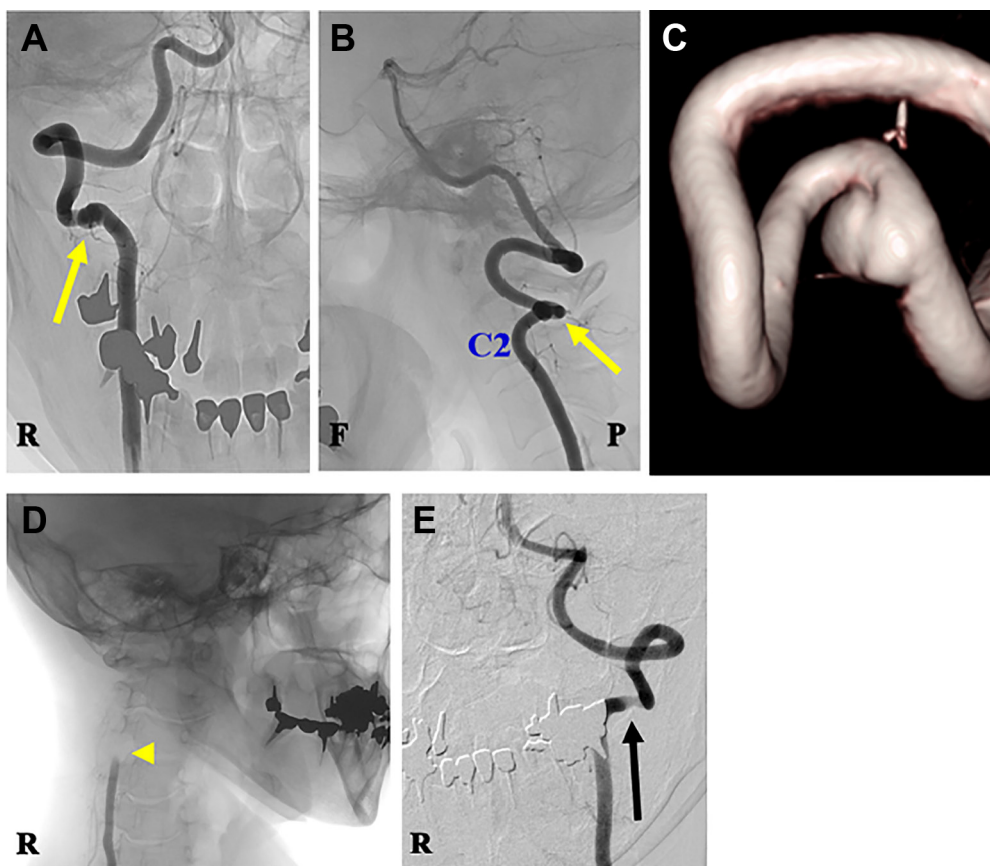


Fig. 2 Preoperative angiographic findings.

Right vertebral angiogram with the neck in the neutral position shows the right vertebral artery dissecting aneurysm (yellow arrows) and no stenosis (A–C). Right vertebral angiogram with the head rotated to the left shows the right vertebral artery occlusion (arrowhead) (D). Left vertebral angiogram with the head rotated to the right shows stenosis at the C1–C2 level (black arrow) (E).

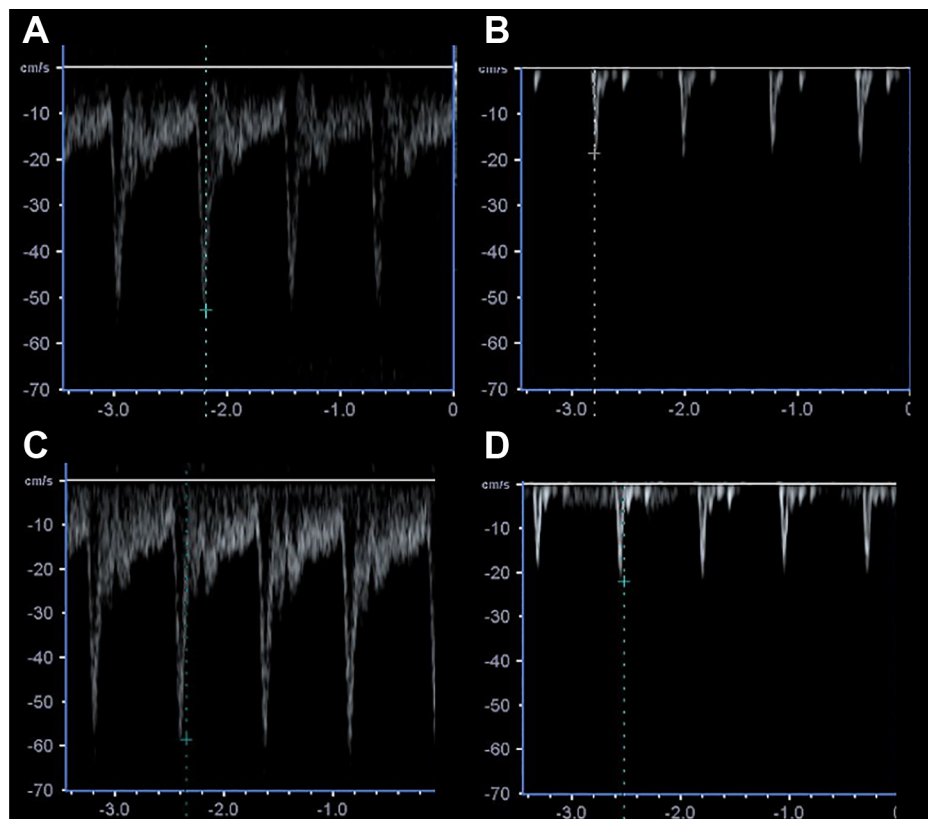


Fig. 3 Neck ultrasonographic findings.

The right vertebral artery Doppler waveform with the neck in the neutral position reveals no abnormality (A), but the Doppler waveform with the head rotated to the left shows flow velocity reduction with no end-diastolic flow velocity (B). The left vertebral artery Doppler waveform with the neck in the neutral position reveals no abnormality (C), but the Doppler waveform with the head rotated to the right shows flow velocity reduction with no end-diastolic flow velocity (D).



Fig. 4 Radiography findings.

Neck flexion X-ray shows the atlantoaxial subluxation. The atlantodental interval (yellow line) is measured as 6.8 mm.

脈に解離性動脈瘤が形成され、瘤内血栓を塞栓源とした脳塞栓を繰り返したと考えた。血液検査、心電図検査、経胸壁心エコー検査、下肢静脈エコー検査、頸胸部 CTA による塞栓源検索で異常所見を認めなかったため、Bow hunter's stroke と診断した。なお、環軸椎亜脱臼の原因は不明であった。頸椎カラー装着による頸部安静ならびにアスピリン 100 mg 内服後は脳梗塞再発なく経過したが、脳梗塞再発予防のため環軸椎後方固定術を脳梗塞発症から約 4 カ月後に施行した。脳梗塞再発なく経過したため術後 6 カ月でアスピリンの内服を終了した。左同名半盲が残存したがその他の症状は改善し、ADL 自立となった。術後 2 年における脳血管造影検査で右椎骨動脈の解離性動脈瘤縮小を認め (Fig. 5)、脳梗塞再発なく経過している。

考 察

本例は、環軸椎亜脱臼を背景として、頭部回旋に伴い右椎骨動脈に解離性動脈瘤が形成され、瘤内血栓による脳塞栓を繰り返した Bow hunter's stroke の 1 例である。

Bow hunter's stroke は、頭部回旋により椎骨動脈が圧迫され血流障害が生じ、後方循環系の脳梗塞を呈するもので¹⁾、脳梗塞発症機序は血流低下に伴う血行力学性もしくは血管内膜損傷に伴い形成された血栓による脳塞栓が一般的である³⁾。本例の

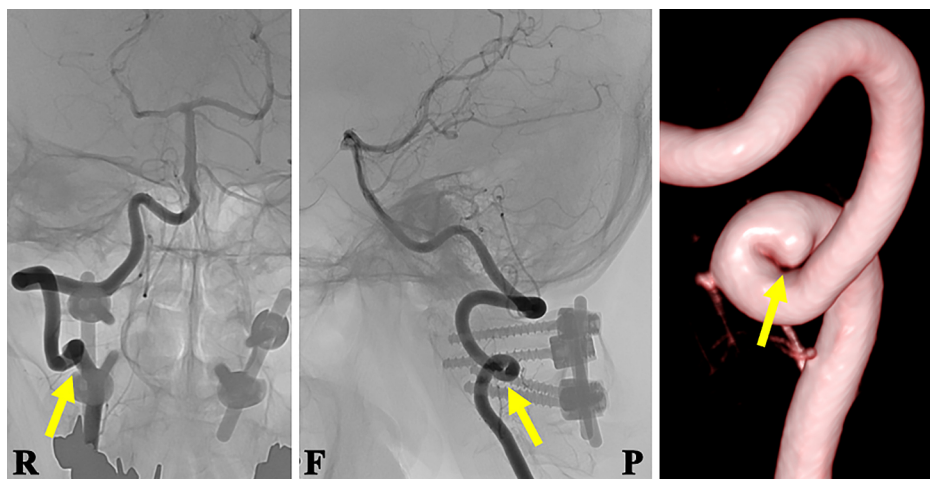


Fig. 5 Postoperative angiographic findings.

Right vertebral angiogram 2 years after C1–C2 posterior fusion shows the shrinkage of the dissecting aneurysm (yellow arrows).

ように頭部回旋による機械的刺激で解離性動脈瘤が生じ、瘤内血栓の artery-to-artery embolism による脳梗塞の報告は非常に少ない⁴⁾。

解離性脳動脈瘤は、内弾性板の断裂とそれに伴う壁への血流の進入により形成される⁵⁾。脳動脈の内弾性板は約 600 mmHg に耐えるが⁶⁾、血行負荷や加齢、外的刺激で次第に断裂する⁵⁾。椎骨動脈はすべての椎体レベルで圧迫される可能性があるが、C1/2 に最も多くみられる⁷⁾。Bow hunter's stroke の基礎疾患として関節リウマチや外傷に伴う環軸椎亜脱臼、横突起での骨棘形成、椎間板ヘルニア、fibrous band や atlanto-occipital membrane の肥厚による圧迫、腫瘍、感染等が報告されているが、基礎疾患を有さない場合もある⁸⁾。

Bow hunter's stroke の診断には、頭部回旋に伴う後方循環系の虚血症状を認めることに加え、画像的に頭部回旋に伴う椎骨動脈の狭窄および閉塞を証明する必要がある。特に血行力学的機序の場合、頭部回旋に伴う片側椎骨動脈の狭窄および閉塞のみでは不十分で、両側椎骨動脈の血流低下を示す必要がある⁹⁾。椎骨動脈は通常 2 本存在するため、片側椎骨動脈の狭窄および閉塞だけでは虚血症状を呈さないからである。椎骨動脈の血行動態の変化は、頸動脈エコー検査で頭部回旋により椎骨動脈の EDV が消失することで証明できるが¹⁰⁾、頭部回旋による脳血管造影検査も病態の評価に有用である。脳血管造影検査は頸動脈エコー検査と比べ侵襲度が高く合併症のリスクがあるが、血行動態を視覚的に確認でき、多くの情報が得られるため治療選択の幅が広がる。特に、本例のように解離性椎骨動脈瘤が原因で生じた Bow hunter's stroke の場合、血行動態に加え解離性椎骨動脈瘤の評価目的に脳血管造影検査が重要である。

治療は、頭部回旋を抑えるように患者指導、カラー装着による頸部安静、抗血栓薬による保存的加療が一般的に行われるが、保存的加療は手術加療と比べて転帰不良となる場合が多く⁷⁾、脳梗塞が再発する前に背景疾患に応じた外科的治療や血管内治療を検討することが重要である。外科的治療としては、環軸椎椎後方固定術もしくは椎骨動脈除圧術が一般的に行われる²⁾。

藤本らによる外科的治療を行った Bow hunter's stroke の 21 例の報告では、脳梗塞再発率は環軸椎椎後方固定術施行例で 0% (0/12)、椎骨動脈除圧術施行例で 33.3% (3/9) であった¹¹⁾。環軸椎椎後方固定術は、頭部回旋に制限が生じることが問題だが根治性は高い。椎骨動脈除圧術は、頭部回旋制限は生じないが、術後に椎骨動脈の再狭窄がしばしば生じ脳梗塞を再発することが問題となる¹²⁾。血管内治療としては、右椎骨動脈狭窄が元々あり頭部右回旋時に左椎骨動脈が狭窄して虚血症状が生じた症例に対する右椎骨動脈へのステント留置術¹³⁾ や頭部左回旋時に右椎骨動脈の血管壁損傷に伴い形成された血栓による脳塞栓を呈した症例に対する母血管閉塞術¹⁴⁾ 等の報告があるが、少数にとどまっている。本例は、カラー装着による頸部安静とアスピリン 100 mg 内服による保存的加療で脳梗塞再発なく経過したが、環軸椎亜脱臼を背景としていたため根治的治療として環軸椎椎後方固定術を施行した。頭部回旋に制限は生じることが、脳梗塞再発予防の観点からは有効な治療であった。

結 語

今回われわれは、繰り返す後方循環系の脳梗塞を頭部回旋による脳血管造影検査で Bow hunter's stroke と診断し、環軸椎椎後方固定術で良好な転帰を得られた 1 例を報告した。保存的加療により脳梗塞再発なく経過した場合でも環軸椎椎後方固定術を検討することが重要と考える。

文 献

- 1) Sorensen BF. Bow hunter's stroke. *Neurosurgery* 1978;2: 259-261.
- 2) Cornelius JF, George B, N'dri Oka D, et al. Bow-hunter's syndrome caused by dynamic vertebral artery stenosis at the cranio-cervical junction--a management algorithm based on a systematic review and a clinical series. *Neurosurg Rev* 2012; 35:127-135.
- 3) Okawara S, Nibbelink D. Vertebral artery occlusion following

- hyperextension and rotation of the head. *Stroke* 1974;5: 640-642.
- 4) Bando K, Okazaki T, Mure H, et al. A juvenile case of Bow hunter's syndrome caused by atlantoaxial dislocation with vertebral artery dissecting aneurysm. *World Neurosurg* 2020; 137:393-397.
 - 5) 水谷 徹. 解離性脳動脈瘤の病理, 病態と治療. *昭和学術誌* 2014;74:482-490.
 - 6) Glynn LE. Medial defects in the circle of Willis and their relation to a *neurysm formation*. *J Pathol Bacteriol* 1940;51:213-222.
 - 7) Rastogi V, Rawls A, Moore O, et al. Rare etiology of bow hunter's syndrome and systematic review of literature. *J Vasc Interv Neurol* 2015;8:7.
 - 8) Miele VJ, France JC, Rosen CL. Subaxial positional vertebral artery occlusion corrected by decompression and fusion. *Spine (Phila Pa 1976)* 2008;33:E366-E370.
 - 9) Yang PJ, Latack JT, Gabrielsen TO, et al. Rotational vertebral artery occlusion at C1-C2. *AJNR Am J Neuroradiol* 1985;6: 96-100.
 - 10) Harpold GJ, Wood CP, Biller J, et al. Vertebral artery occlusion producing lateral medullary syndrome diagnosed by pulsed Doppler ultrasound. *J Ultrasound Med* 1985;4:93-96.
 - 11) 藤本京利, 田村健太郎, 本山 靖ら. Bow hunter stroke の 外科治療. *脳卒中の外科* 2010;38:174-180.
 - 12) 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* 1997;86:619-623.
 - 13) 五味正憲, 服部伊太郎, 堀川文彦ら. 血管内手術が奏功した bow hunter's stroke の一例. *No Shinkei Geka* 2006;34:189-192.
 - 14) Kutsuna F, Morofuji Y, Shiozaki E, et al. Endovascular coil embolization for recurrent Bow hunter's stroke. *Intern Med* 2022;61:3595-3598.

本報告の要旨は、第 245 回日本神経学会関東・甲信越地方会で発表し、会長推薦演題に選ばれた。

謝辞：本例の環椎軸椎後方固定術を施行して下さった富永草野病院整形外科 澤上公彦先生に深謝申し上げます。

COI：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。

***Corresponding author**：福本淳貴

新潟市民病院（〒 950-1197 新潟県新潟市中央区鐘木 463-7）

Repeated Bow hunter's stroke by artery-to-artery embolism from the vertebral artery dissecting aneurysm formed by head rotation: A case report

Junki Fukumoto, M.D.¹⁾²⁾, Mariko Hokari, M.D., Ph.D.¹⁾²⁾, Yusuke Sakata, M.D.¹⁾²⁾, Aki Sato, M.D., Ph.D.¹⁾,
Shuichi Igarashi, M.D., Ph.D.¹⁾ and Kenichi Morita, M.D., Ph.D.²⁾

1) Department of Neurology, Niigata City General Hospital

2) Department of Cerebrovascular medicine, Niigata City General Hospital

Abstract: A 55-year-old woman suffered from diplopia and occipital pain after shoveling snow. She was diagnosed with the right vertebral artery dissecting aneurysm at the level of the axial vertebra and repeatedly had cerebral infarctions in the posterior circulation. She had subluxation of the atlantoaxial vertebra as an underlying disease. Right vertebral angiogram with the head rotated to the left showed the right vertebral artery occlusion and left vertebral angiogram with the head rotated to the right showed stenosis at the C1–C2 level, leading to the diagnosis of Bow hunter's stroke. After wearing a cervical collar and taking 100 mg of aspirin, she had no recurrence of cerebral infarction and later underwent C1–C2 posterior fusion to prevent the recurrence of cerebral infarction. She finished taking aspirin 6 months after the surgery, and there has been no recurrence of cerebral infarction. We report here a case of Bow hunter's stroke, a rare disease, with good clinical outcomes after C1–C2 posterior fusion.

Key words: Bow hunter's stroke, vertebral artery dissection aneurysm, subluxation of the atlantoaxial vertebra, dynamic cerebral angiography, C1–2 posterior fusion

Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2024;64:632-636

doi: 10.5692/clinicalneurol.cn-001971