

〈脳神経外科速報 vol.33 no.4 e20233304a, 2023〉

Bow Hunter Syndrome に伴う 椎骨動脈解離に対し環軸椎後方 固定術を施行した 1 例

澤村 壯¹⁾, 立林 洸太郎³⁾, 陰山 博人³⁾, 岡田 崇志²⁾, 清水 史記¹⁾, 垣田 寛人¹⁾, 吉村 紳一³⁾

1) 医療法人清仁会シミズ病院脳神経外科 〒615-8237 京都府京都市西京区山田中吉見町 11-2

2) 宝塚市立病院脳神経外科

3) 兵庫医科大学病院脳神経外科

Key Slide

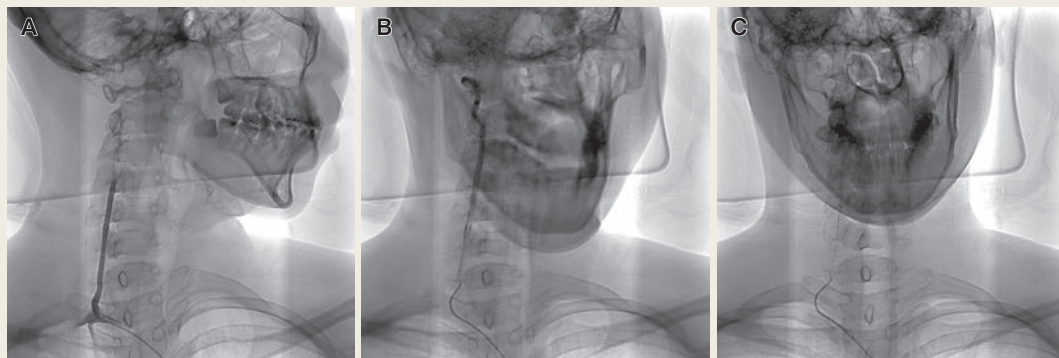


Fig.2 Dynamic study on digital subtraction angiography (DSA)

A : Contrast stagnation in 60-degree rotation.

B, C : Gradual washout of contrast medium when the head was rotated to the neutral position.

Posterior atlantoaxial fixation for Bow Hunter Syndrome with symptomatic vertebral artery dissection : A case report

Sou SAWAMURA ¹⁾, Kotaro TATEBAYASHI ³⁾, Hiroto KAGEYAMA ³⁾, Takashi OKADA ²⁾, Fuminori SHIMIZU ¹⁾, Hiroto KAKITA ¹⁾, Shinichi YOSHIMURA ³⁾

1) Department of Neurosurgery, Shimizu Hospital

2) Department of Neurosurgery, Takarazuka City Hospital

3) Department of Neurosurgery, Hyogo College of Medicine

A 20-year-old female presented with the sudden onset of left hemiparesis and was diagnosed with a stroke. Although conservative therapy was initiated, she had recurrent cerebral infarctions involving the posterior circulation territory. Carotid ultrasonography revealed the disappearance of vertebral arterial flow during the contralateral head rotation. We observed vertebral artery occlusion during head rotation; therefore, the patient was diagnosed with Bow Hunter Syndrome. Her vertebral artery was dissected. We performed posterior atlantoaxial

fixation to prevent recurrent posterior circulation stroke. The vertebral artery dissection was improved, and the cerebral infarction did not recur postoperatively.

Key Words : Bow Hunter Syndrome, vertebral artery dissection, posterior atlantoaxial fixation

(Received November 30, 2022; Accepted January 12, 2023)

Correspondence to Sou SAWAMURA, M.D.,

Department of Neurosurgery, Shimizu Hospital, 11-2 Yamadanakayoshimi-cho, Nishikyo-ku, Kyoto-shi, Kyoto, 615-8237, Japan

E-mail: tmp.zt1 [at] gmail.com

I. 緒言

Bow Hunter Syndrome (BHS) は頭位回旋により、椎骨脳底動脈領域の循環不全を生じ、眩暈や意識障害を来す病態である。今回、若年女性の繰り返す脳梗塞で発見され、進行性の椎骨動脈の解離性変化が環軸椎後方固定術にて改善した BHS の 1 例を経験したので報告する。

II. 症例提示

患者：20 歳女性。

主訴：突然の左半身不全麻痺。

既往：特記なし。

現病歴：X 年 Y 月、仕事中に突然の左半身不全麻痺を呈し、当院救急搬送となった。

入院時現症：意識清明。左半身不全麻痺を認め、NIHSS スコア 3。血圧 126/88 mmHg、脈拍 62 回 / 分・整。

入院時検査所見：血液検査では、D-dimer $0.5 \mu\text{g/dL}$ 未満。その他、特記所見なし。MRI では、右視床に MRI-DWI で高信号域を認めた (Fig. 1A)。MRA では、明らかな主幹動脈の狭窄や閉塞、もやもや血管や解離性病変は認めなかった。脳血管造影検査を実施したが、明らかな血管奇形や狭窄、閉塞所見は認めなかった。

入院後経過：徐々に症状は改善、軽快したため、自宅退院となった。バイアスピリン 100 mg/ 日を内服し、外来にて精査を行うこととした。

外来検査所見：頸動脈エコーでは、両側総頸動脈および内頸動脈に狭窄所見を認めなかったが、椎骨動脈に関しては、描出不良であった。採血検査で血管炎を示唆する所見は明らかでなく、経胸壁および経食道心エコーにおいても塞栓源や卵円孔開存などの所見は認めなかった。

経過：初発から 2 カ月経過した時点で、起床時発症の眩暈が出現し、救急搬送となった。精査の結果、MRI にて視床および小脳に新規虚血性変化を認めた (Fig. 1B1, B2)。本症例は、若年女性の再発性脳梗塞症例で、背景疾患の存在が疑われた。また、局在は視床および小脳に限局した梗塞で、椎骨脳底動脈領域に原因があることが予想された。初回入院時の MRA および脳血管造影検査では、血管の奇形は認めなかったが、外来で実施した頸動脈エコーにて、頸部回旋時の椎骨動脈が描出不良であったことから、頸部を回旋した状態で血管評価を行うこととした。右椎骨動脈造影を実施すると、頸部左 30° 回旋では造影遅延は認めなかった。次に、左 60° 回旋し造影すると、造影剤は椎骨動脈内で停滞し、頸部回旋を解除することで、速

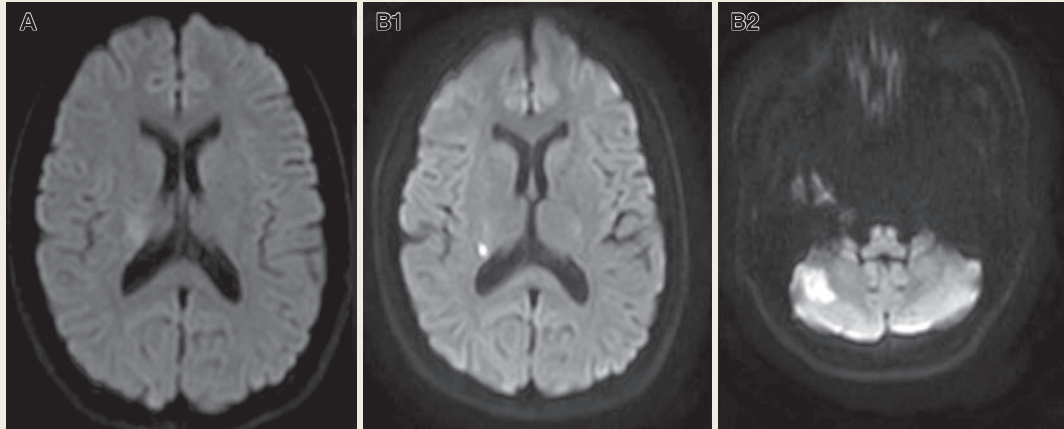


Fig. 1 Magnetic resonance image - Diffusion-weighted image showed a restricted area of diffusion

A : In the right thalamus on the first admission.

B1 and B2 : In the right thalamus and cerebellum on the second admission.

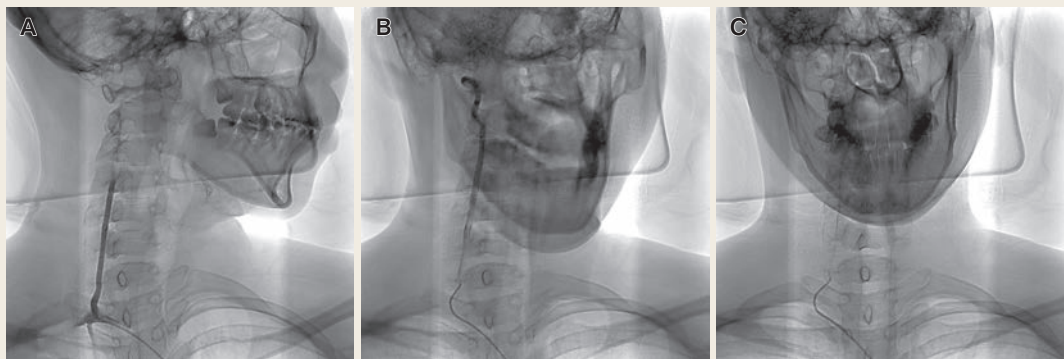


Fig. 2 Dynamic study on digital subtraction angiography (DSA)

A : Contrast stagnation in 60-degree rotation.

B, C : Gradual washout of contrast medium when the head was rotated to the neutral position.

やかに流出した (Fig. 2)。以上より、BHSと診断し、バイアスピリン 100 mg/日、クロピドグレル 75 mg/日の内服で保存的加療の方針となった。

1カ月後に起床時発症の眩暈が出現し、MRIで脳梗塞再発と診断した。また、入院中にも再発を認めた。3D-CTAにてC2横突孔遠位部で、椎骨動脈の狭窄所見を認めた (Fig. 3)。病変部は頭部回旋時の血管造影検査における狭窄部位と一致した。その後行った複数回の椎骨動脈造影で、同部位の形態は徐々に変化し、pearl and string signを呈し、解離性椎骨動脈瘤の増悪を示唆した。内科的治療抵抗性の病態と考え、手術加療の方針とし、環軸椎後方固定術を実施した (Fig. 4)。術後、抗血小板薬は中止し2年経過したが、脳梗塞の再発や眩暈の出現はない。また、初回入院時には認めていなかったが、経過とともに出現した椎骨動脈の解離性変化に関しても術後改善を認めている (Fig. 5A : 初診時, 5B : 初診から半年後, 5C : 術後1年)。



Fig. 3 Computed tomography angiography (CTA) demonstrated a compressed vertebral artery at the transverse foramen (white arrow)

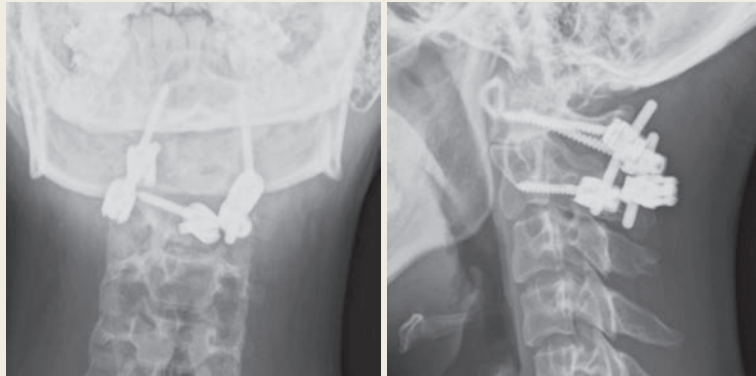


Fig. 4 Atlantoaxial posterior fixation

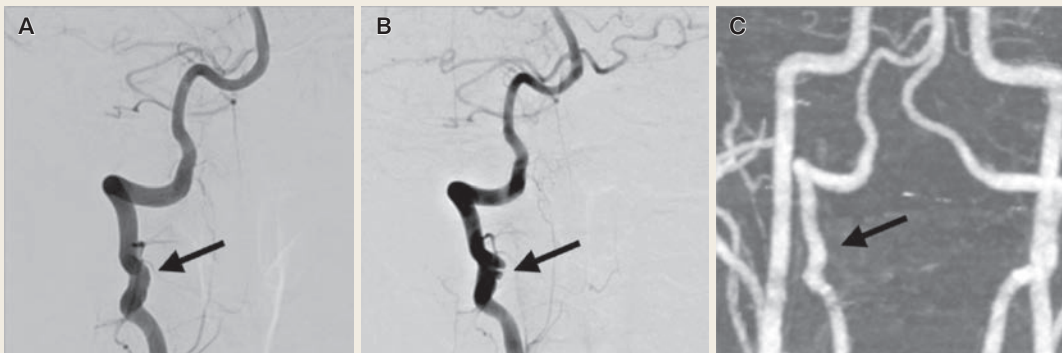


Fig. 5 Image showing the progress of the dissection

A : DSA on the first admission demonstrated no abnormal findings.

B : DSA 6 months after the first admission showed right vertebral artery dissection distal to the C2 foramen.

C : Post-operative CTA at one year demonstrated disappearance of dissection.

III. 考 察

BHSは、頭位変換により血管が閉塞し、椎骨脳底動脈領域の一過性脳虚血発作や脳梗塞を来す、まれな病態である¹⁾。一般に頸椎の過回旋や過伸展により発症し、環軸椎亜脱臼、頸椎の解剖学的要素、周囲組織による圧迫が原因とされている。BHSは50代から70代の男性に好発するとされる^{2, 3)}が、近年、血管の解離性変化が原因の塞栓性脳梗塞を契機に発見される若年性のBHSの報告を複数認める⁴⁾。本症例も、若年女性の繰り返す脳梗塞を契機に発見されたBHSの症例であった。

初発症状は工作中に生じ、その後は起床時に発症しており、頸部回旋という典型的なキーワードやエピソードがなかったため診断に難渋した。また、若年性BHSの原因として、スポーツ中に発症した報告がある⁵⁾が、本症例において明らかな外傷や突発的な頸部回旋のエピソードは認めなかった。環軸椎の亜脱臼や骨棘形成などの解剖学的要素の異常、炎症性変化や腫瘍などが原因の周囲組織による圧迫は認められなかった。この年齢になって初めて発症した理由ははっきりしないが、環軸椎の過回旋が原因となったと考えられる。

BHSの治療法として、確立したものはまだないが、保存的治療にて改善する報告が散見され^{6, 7)}、本症例でも内科的加療をまず選択した。覚醒時は頸椎過回旋に注意し、就寝中は枕などの寝具を利用して、過回旋の予防に努めた。しかし、就寝中に梗塞の再発を繰り返したため、外科的治療を検討した。血管造影検査では、経時的に椎骨動脈の形態が変化した。当初、頸部回旋時の椎骨による圧迫に伴う動脈の形態変化を認めるのみであったが、最終的には頸部回旋にかかわらず、血管の形態変化(pearl and string sign)を認め、固定術の必要性が示唆された。外科的には、環椎または軸椎の横突孔開放による除圧や、環軸椎後方固定術による、椎骨動脈の牽引性変化を予防する手術法が選択肢として挙げられる⁸⁾。本症例では①環軸椎過回旋による椎骨動脈の閉塞予防と、②機械的刺激により惹起された解離性変化の進行予防を目的に固定術を選択した。環軸椎後方固定術は回旋制限が生じることがデメリットとされているが、それらの手術による回旋制限が日常生活に与える影響はほとんどないとされている^{5, 8)}。術後、局所安定性が保たれ、血管内皮への機械的刺激が消失し、画像上の解離性変化の改善を得た。

塞栓性脳梗塞を来す症例は再発率が高く、最終的に多くの症例で外科的治療が行われている³⁾。本症例においても1度目の再発の際、内科的治療にて保存的に経過を見たが、最終的には3度の再発を起こし、固定術を行った。初回の再発時点で、外科的治療を考慮すべきであったと考えられる。BHSと診断した場合、病態の原

因が血行力学的機序か、塞栓性機序かを検討し、解離性変化を伴う場合や、再発を繰り返す場合は、早期に外科的治療を行うことが望ましいと考えられる⁸⁾。

IV. 結 語

BHS に伴う椎骨脳底動脈解離が環軸椎後方固定術後に改善した1例を報告した。塞栓性脳梗塞を生じ得る解離性変化を来したBHSの場合、脳梗塞再発を来す前に、外科的治療を行うことが勧められる。

文献

- 1) Sorensen BF: Bow hunter's stroke. *Neurosurgery* 2: 259-61, 1978
- 2) Schulz R, et al: Rotational vertebral artery occlusion ("bow hunter syndrome"). *Eur Spine J* 30: 1440-50, 2021
- 3) Rastogi V, et al: Rare Etiology of Bow Hunter's Syndrome and Systematic Review of Literature. *J Vasc Interv Neurol* 8: 7-16, 2015
- 4) Shingai Y, et al: Bow hunter's syndrome due to an embolic mechanism: illustrative case. *J Neurosurg Case Lessons* 1: CASE20150, 2021
- 5) Kageyama H, et al: Juvenile Cerebral Infarction Caused by Bow Hunter's Syndrome during Sport: Two Case Reports. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 56: 580-3, 2016
- 6) Jargiello T, et al: Power Doppler imaging in the evaluation of extracranial vertebral artery compression in patients with vertebrobasilar insufficiency. *Eur J Ultrasound* 8: 149-56, 1998
- 7) 田中将平 ほか: 自然軽快したbow hunter症候群の1例. *臨床神経* 52: 34-7, 2012
- 8) 藤本京利 ほか: Bow hunter strokeの外科治療. *脳卒中の外科* 38: 174-80, 2010