

ボウリングにより発症した脳脊髄液漏出症

井上 裕康^{1)*} 竹本 将也²⁾ 武藤 昌裕³⁾
北村 太郎¹⁾ 山田健太郎¹⁾

要旨：脳脊髄液漏出症は交通外傷や腰椎穿刺を契機に発症しうることは知られている。今回ボウリングにより発症した症例を経験した。57歳の女性。ボウリングフォームを改造した後、起立性の頭痛と複視が出現した。頭部・脊椎MRI、CTミエログラフィーにより、脳脊髄液漏出症、それに伴う右外転神経障害と診断した。保存的治療に抵抗性であったため、硬膜外ブラッドパッチを行ったところ頭痛・外転神経麻痺とも改善した。無理な投球フォームのボウリングで生じた腕神経叢・神経根への繰り返し牽引力が原因で微小な髄液漏出を起し低髄液圧を来した可能性がある。ボウリングで発症した報告はなく発症機序を考える上で貴重な症例である。

(臨床神経 2018;58:202-205)

Key words：脳脊髄液漏出症，起立性頭痛，外転神経麻痺，ボウリング，低髄液圧症候群

はじめに

脳脊髄液漏出症は、髄液が漏出することで髄液圧の低下をきたし、起立性の頭痛やめまい、耳鳴り、悪心、複視など様々な症状を呈する疾患である。原因としては交通事故など頸部への外傷によるものや、腰椎穿刺後の医原性のものが知られているが、明らかな誘因がなく特発性と診断されることも多い¹⁾。

今回ボウリングで発症し、右外転神経麻痺を伴い硬膜外髄液パッチ (epidural blood patch; EBP) が有効であった脳脊髄液漏出症を経験した。ボウリングで発症した報告はなく、発症機序を考える上で貴重な症例である。

症 例

症例：57歳女性

主訴：複視 頭痛

既往歴：特記すべきものなし。

嗜好：喫煙なし・飲酒なし。

現病歴：趣味でボウリングをしており2017年3月下旬に肩や頸部に負担のかかる投球フォームに改造した。通常であれば胸の前で構えたボールを前方から振り子のように後方へスムーズに振り上げ投球する一般的なボウリング投球フォームに対し、本症例では、「力を抜く」ことを意識し胸の前に構えたボールを自然落下でズドンと落とす勢いで振り上げると

いう投球フォームにした。患者本人も首・肩に衝撃を感じながら投球を行っていた (Fig. 1)。投球フォーム改造のため集中的に練習し1日5ゲーム5日間通い、その1週間後から強い起立性の頭痛を発症した。さらに1週間後から複視も出てきたため、当院に入院した。

一般理学所見：身長166cm，体重58.5kg，BMI 21。体温37.1°C，血圧161/105mmHg，脈110回/分・整，SpO₂ 98%。項部硬直なし，Jolt accentuation 陰性。起立後5分程度で生じる強い頭痛と軽度耳鳴を認めた。

神経学的所見：意識は清明。脳神経では右注視時に複視があり，右眼の軽度外転制限があった。運動系，感覚系に異常はなく，四肢の腱反射は正常，病的反射もなかった。

検査所見：入院時の全血算，血液生化学検査所見は正常であった。頭部CTでは，年齢に比してわずかに脳室の狭小化が見られた。頭部MRIでは小脳扁桃が軽度下垂しており，硬膜のびまん性肥厚や静脈洞拡張があった。脊椎MRIでは椎管内硬膜外静脈叢の拡張，腰椎レベルではDinosaur Tail Sign²⁾を認めた。CTミエログラフィーでは頸胸椎移行部レベルで硬膜外に造影剤が見られた (Fig. 2)。その際の腰椎穿刺では髄液圧は0mmH₂Oであった。脳脊髄液漏出症画像判定基準・画像診断基準³⁾により低髄液圧症「確定」ならびに脳脊髄液漏出症「確実」と診断した。

経過：安静，補液 (1,500ml/日) による保存的治療で経過を見たが，起立時の頭痛は改善なく，入院3日目に右眼の外

*Corresponding author: 名古屋市立東部医療センター神経内科 [〒464-8547 名古屋市千種区若水1丁目2番23号]

¹⁾ 名古屋市立東部医療センター神経内科

²⁾ 地域医療機能推進機構中京病院脳神経外科

³⁾ 名古屋市立東部医療センター放射線科

(Received November 27, 2017; Accepted January 15, 2018; Published online in J-STAGE on February 28, 2018)

doi: 10.5692/clinicalneurolog.cn-001124

Normal form



Form of this case (reproduced)



Fig. 1 Normal and irregular bowling form.

In a normal bowling action, the ball is swung smoothly from the front of the body to behind the body, like a pendulum. In this case, the ball was swung with force, followed by a free fall drop. The patient felt a shock in the neck and shoulder each time they swung the ball. These pictures are reproduced by Taro Kitamura.

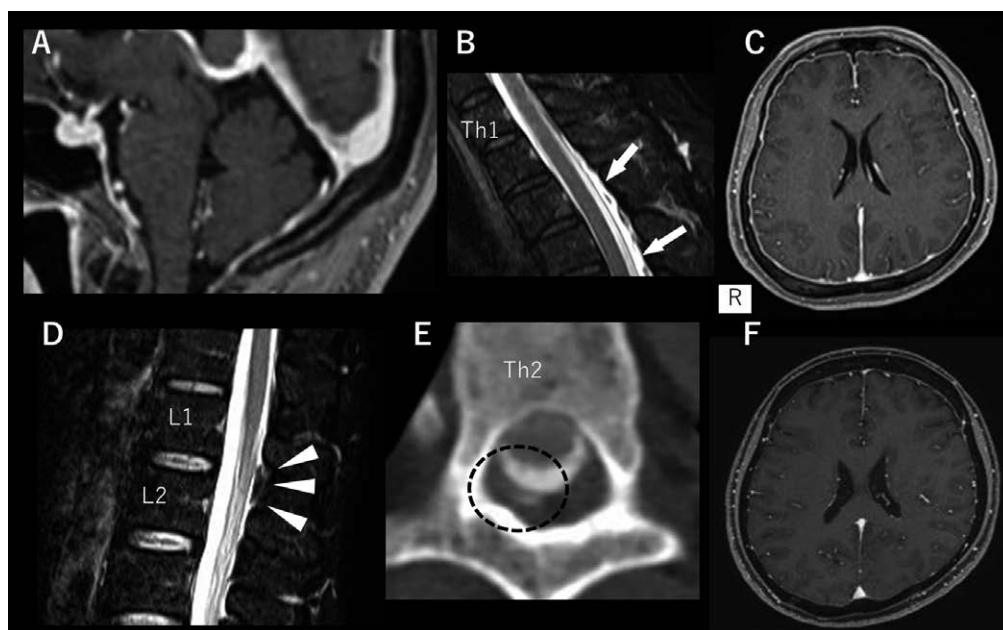


Fig. 2 MRI of the brain and spine, and CT myelography.

(A) Sagittal gadolinium-enhanced T_1 -weighted MRI of the brain (1.5 T, 3D GRE, TR = 3.71, TE = 1.35). The inferior intercavernous sinus and horizontal sinus were mild extended. The cerebellar tonsil was slightly dropping. (B) Sagittal fat-suppressed T_2 -weighted MRI of the upper spine (1.5 T, FSE, TR = 3,450, TE = 95). Hyperintense lesions dorsal to the spinal dural sac, representing the epidural space expansion, were found (arrows). (C) Axial gadolinium-enhanced T_1 -weighted MRI of the brain (1.5 T, 3D GRE, TR = 3.71, TE = 1.35). The meninges showed diffuse thickening and enhancement. (D) Sagittal fat-suppressed T_2 -weighted MRI of the lower spine (1.5 T, FSE, TR = 5,010, TE = 94) showed characteristic dorsal epidural signal changes contributing to the "Dinosaur tail sign" (arrowheads). (E) CT myelography at Th2 level, showing epidural contrast agent leakage in the spine (dash lines). (F) Axial gadolinium-enhanced T_1 -weighted MRI of the brain (3 T, 3D GRE, TR = 8.76, TE = 4.1). The thickness and enhancement of meninges disappeared on symptom improvement after 4 months.

転制限が悪化し正中を越えて外転不可能となったため保存的治療抵抗性と判断し入院 8 日目に頸椎胸椎移行部ならびに腰椎レベルに対し EBP を行った。頭痛に関しては速やかに消失した。右外転神経麻痺に関しては当初あまり変化が見られなかったが、発症 2 か月ごろから徐々に改善を認め、発症 4 か月時点で完全に消失した。

考 察

本症例で、以下の 2 点が示された。ボウリングで脳脊髄液漏出症を発症しうること。保存的治療抵抗性の脳脊髄液漏出症に伴う外転神経麻痺に対し EBP が有効であることである。

第一に、ボウリングで脳脊髄液漏出症を発症しうる。脳脊髄液漏出症の発症については、むち打ちなどの交通外傷や腰椎穿刺後の医原性に発症することはよく知られている¹⁾。中にはウェイトリフティングや、カイロプラクティックで発症した報告が見られる⁴⁾⁵⁾が、本症例のようにボウリングを契機に発症した症例は私たちが検索した範囲では認められず本症例がその第 1 例である。類似した報告としては、ラケットスポーツで低髄液圧症を呈した 2 例があり、テニスやスカッシュを契機に外転神経麻痺を伴う低髄液圧症を呈したことが報告されている⁶⁾。共通した機序として上腕・肩へ繰り返し牽引力が加わっていることが考えられる。本症例では 15 ポンド (約 6.8 kg) と女性としては比較的重いボールを使用していた。通常のフォームとは異なり自然落下させる勢いで振り上げるフォームに改造し、患者自身首・肩に衝撃を感じながら投球を行っていた。実際どれぐらいの力が加わったのか概算する。6.8 kg の物質を約 50 cm 自然落下させ制動距離 5 cm と仮定すると衝撃力は 136 kgf となる。250~500 回、繰り返し腕神経叢・神経根に相当の牽引力が加わったことで硬膜に微小な傷が生じ、髄液漏出を来した可能性が高い。逆に引き抜き損傷を含む外傷性腕神経叢障害の 4.8% で脳脊髄液漏出症による頭痛が見られたという報告もあり⁷⁾ 今回の機序についての考察を裏付けるものである。

一般に脳脊髄液漏出症は何らかの急激な外力が加わって比較的早期に症状を呈することが多いが、本症例ではボウリングから頭痛・外転神経麻痺までの発症に 1~2 週間の時間があいている。一時の外力で突然起きた損傷ではなく、一定の牽引力が繰り返し腕神経叢・神経根に加わったことで微小な傷を生じ、漏出が緩徐に起こり発症まで時間を要したと考えている。タイムラグがあることで、脳脊髄液漏出症と外力との関連が見落とされている可能性があり、今まで特発性低髄液圧症候群と診断されていた症例の中に本症例のような機序で発症した症例が含まれている可能性が示された。

第二に、保存的治療抵抗性の脳脊髄液漏出症に伴う外転神経麻痺に対し EBP が有効であった。低髄液圧症の症状として起立性頭痛が典型的であるが、本症例のように複視・視野異常などの視覚的異常が 30~40% で生じるという報告がある⁸⁾。そのうち外転神経障害によるものが最多で 83% を占め、そのうちおよそ 1/3 ずつで両側性、右側、左側となっていた⁹⁾。

外転神経が最も障害を受けやすい理由としては、頭蓋内を走行する距離が物理的に長く牽引による外力の影響を最も受けやすいためと報告されている¹⁰⁾。本症例では右外転神経麻痺を呈したが、一側に現局した原因を示唆する所見はなかった。保存的治療に抵抗性で症状の悪化を認めたため EBP を行ったところ改善を認めた。脳脊髄液漏出症に伴う外転神経麻痺に対する治療について保存的治療抵抗性の場合には EBP が重要な選択肢となりうることが示された。

ボウリングを契機に発症した脳脊髄液漏出症、それに伴う右外転神経麻痺の症例を経験した。ボウリングでの発症の報告は初めてであるが、発症の機序として無理な投球フォームにより腕神経叢・神経根への繰り返し牽引力により微小な髄液漏出を起こし低髄液圧を生じたと示唆された。今まで特発性低髄液圧症候群といわれていた症例の中にも同様の機序が隠れていた可能性もあり病歴聴取をする際に念頭に置く必要がある。また脳脊髄液漏出症に伴う外転神経麻痺に対して保存的治療抵抗性の場合には EBP も前向きに検討すべきである。

本報告の要旨は第 149 回日本神経学会東海北陸地方会 (福井) で発表した。

※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。

文 献

- 1) Lin JP, Zhang SD, He FF, et al. The status of diagnosis and treatment to intracranial hypotension, including SIH. *J Headache Pain* 2017;18:4.
- 2) Sakurai K, Kanoto M, Nakagawa M, et al. Dinosaur tail sign: a useful spinal MRI finding indicative of cerebrospinal fluid leakage. *Headache* 2017;57:917-925.
- 3) 佐藤慎哉. 脳脊髄液漏出症画像判定基準・画像診断基準 (総説). *日本保険医学会誌* 2012;110:193-201.
- 4) Knutson GA. Intracranial hypotension causing headache and neck pain: a case study. *J Manipulative Physiol Ther* 2006;29:682-684.
- 5) Morelli N, Gallerini S, Gori S, et al. Intracranial hypotension syndrome following chiropractic manipulation of the cervical spine. *J Headache Pain* 2006;7:211-213.
- 6) Garcia-Albea E, Cabrera F, Tejeiro J, et al. Delayed postexertional headache, intracranial hypotension and racket sports. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1992;55:975.
- 7) Hébert-Blouin MN, Mokri B, Shin AY, et al. Cerebrospinal fluid volume-depletion headaches in patients with traumatic brachial plexus injury. *J Neurosurg* 2013;118:149-154.
- 8) Ferrante E, Wetzl R, Savino A, et al. Spontaneous cerebrospinal fluid leak syndrome: report of 18 cases. *Neurol Sci* 2004;25:S293-S295.
- 9) Zada G, Solomon TC, Giannotta SL. A review of ocular manifestations in intracranial hypotension. *Neurosurg Focus* 2007;23: E8.
- 10) Horton JC, Fishman RA. Neurovisual findings in the syndrome of spontaneous intracranial hypotension from dural cerebrospinal fluid leak. *Ophthalmology* 1994;101:244-251.

Abstract**Cerebrospinal fluid leakage and abducens nerve palsy caused by bowling activity**

Hiroyasu Inoue, M.D.¹⁾, Masaya Takemoto, M.D.²⁾, Masahiro Muto, M.D.³⁾,
Taro Kitamura, M.D.¹⁾ and Kentaro Yamada, M.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Nagoya City East Medical Center

²⁾Department of Neurosurgery, Social Insurance Chukyo Hospital

³⁾Department of Radiology, Nagoya City East Medical Center

Cerebrospinal fluid leakage can develop due to traffic trauma or lumbar puncture; however, in many cases, it develops spontaneously without any obvious cause. This report describes a case of cerebrospinal fluid leakage caused by bowling activity. A 57-year-old woman adjusted her bowling form, which led to the development of an orthostatic headache and double vision. Cerebrospinal fluid leakage and right abducens nerve palsy was diagnosed, which was resistant to conservative treatment. An epidural blood patch was performed, leading to an improvement in the headache and abducens nerve palsy. The hypotension and nerve palsy may have been caused by small amounts of cerebrospinal fluid leakage due to repeated traction of the brachial plexus and nerve root resulting from an irregular bowling form. To the best of our knowledge, there are no reported cases of cerebrospinal fluid leakage caused by bowling; therefore, this is a valuable case to investigate the mechanism of onset. Similar mechanisms may have remained undiscovered in other cases of spontaneous intracranial hypotension.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2018;58:202-205)

Key words: cerebrospinal fluid leakage, orthostatic headache, abducens nerve palsy, bowling, intracranial hypotension
