

症例報告

35年前の鎖骨骨折により椎骨脳底動脈領域梗塞を来した1例

小椋 史織¹⁾ 田中瑛次郎¹⁾ 芦田 真士¹⁾
 前園 恵子¹⁾ 永金 義成^{1)*}

要旨：症例は61歳、男性、35年前に右鎖骨骨折の既往。半年前から右腕の運動時痛があった。ある日、回転性めまい・耳鳴に続く左上肢脱力としびれ感が出現し、受診した。右後大脳動脈閉塞による脳梗塞と診断し、発症188分後からアルテプラゼを静注した。症状は一旦改善したが、ヘパリン静注継続中の第9病日に右後下小脳動脈領域梗塞を再発した。血管エコーでは右鎖骨骨折の近傍で右鎖骨下動脈が血栓性閉塞し、近位側に可動性血栓を認めた。右鎖骨骨折は偽関節を形成し、これによる直接の圧迫や周囲の軟部組織の癒着により鎖骨下動脈が進行性に狭窄・閉塞し、盲端内の血栓が逆行性に右椎骨動脈に流入して塞栓症を発症したと推察した。

(臨床神経 2018;58:631-635)

Key words：脳梗塞，塞栓症，鎖骨下動脈閉塞，鎖骨骨折，胸郭出口症候群

はじめに

頸肋による鎖骨下動脈閉塞が稀に脳梗塞を来すことは古くから知られている¹⁾。右鎖骨下動脈の血栓性閉塞が腕頭動脈まで進展することにより右内頸動脈領域梗塞を発症する例が典型的であるが²⁾、末梢の鎖骨下動脈に生じた壁血栓が逆行性に右総頸動脈や椎骨動脈に流入して脳梗塞を発症する例もある³⁾。鎖骨下動脈閉塞の原因は、頸肋や第一肋骨の異常のほか、野球やクリケットの投手など上肢の外転を繰り返すアスリートでも生じることがある⁴⁾。今回、35年前に生じた鎖骨骨折による鎖骨下動脈閉塞が脳梗塞の原因と考えられた稀な症例を経験したため、文献の考察を加えて報告する。

症 例

症例：61歳、男性

主訴：左上肢脱力としびれ感

既往歴：交通外傷による右鎖骨骨折(26歳)、高血圧症、脂質異常症、高尿酸血症。

内服薬：アムロジピン 2.5mg/日、プラバスタチン 10mg/日、ベンズプロマロン 25mg/日。

嗜好：喫煙 30~40本/日、飲酒 2合/日。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：半年前から右腕を酷使した際に右前腕の疼痛を自覚していた。2014年7月某日午前2時、排尿後に寝室へ戻ると同時に回転性めまいと両側の耳鳴が出現した。家族に伝えようとするや呂律が回らず、続いて左上肢脱力としびれ感

が出現したため、午前2時59分に受診した。初診時の血圧136/74 mmHg、脈拍80/分・整。橈骨動脈の触知は左右差なく、その他の一般身体所見に異常を認めなかった。神経学的には意識清明で、構音障害と左上四分盲、左上肢不全麻痺、左半身で異常感覚と表在覚の低下を認めた(NIH Stroke Scale 5)。

検査所見：血算および凝固能は正常で、生化学では中性脂肪206 mg/dlが高値であった。心電図は洞調律で、胸部レントゲンは異常を認めなかった。頭部MRIでは右視床および右側頭葉内側から後頭葉に拡散強調画像で高信号域を認め(Fig. 1A~C)、MRAでは右後大脳動脈迂回槽部以遠の描出欠損を認めた(Fig. 1E)。頸動脈エコーではプラークや狭窄は認めず、血流パターンに異常はなかった。入院後に行った経胸壁心エコー、ホルター心電図で塞栓源性心疾患は認めず、経食道エコーでは右→左シャントを認めたが、下肢静脈エコーでは深部静脈血栓は検出しなかった。

経過：発症188分後にアルテプラゼ(rt-PA)静注療法を開始した。投与後に左上肢麻痺は消失し、翌日には左下肢麻痺も消失した。rt-PA投与24時間後からヘパリン1万単位/日の持続静注を開始した。第8病日に右橈骨動脈の触知が不良となり、右手根部の橈骨動脈血流は血管エコーで検出できなかった。同日撮像した3-dimensional CT angiography (3D-CTA)では、右鎖骨下動脈は椎骨動脈および甲狀頸動脈分岐後約1 cm遠位で閉塞し、側副血行により右腋窩動脈から右橈骨動脈および尺骨動脈近位部まで描出を認めた(Fig. 2)。右鎖骨骨折部は、胸骨側が前上方、肩峰側が後下方に変位して偽関節を形成し、周囲の軟部組織とともに鎖骨下動脈を後下方へ圧迫していた。大動脈から右椎骨動脈にかけては狭窄や壁不

*Corresponding author: 京都第二赤十字病院脳神経内科〔〒602-8026 京都市上京区釜座通丸太町上ル春帯町355-5〕

¹⁾ 京都第二赤十字病院脳神経内科

(Received May 30, 2018; Accepted August 2, 2018; Published online in J-STAGE on September 29, 2018)

doi: 10.5692/clinicalneurology-001191

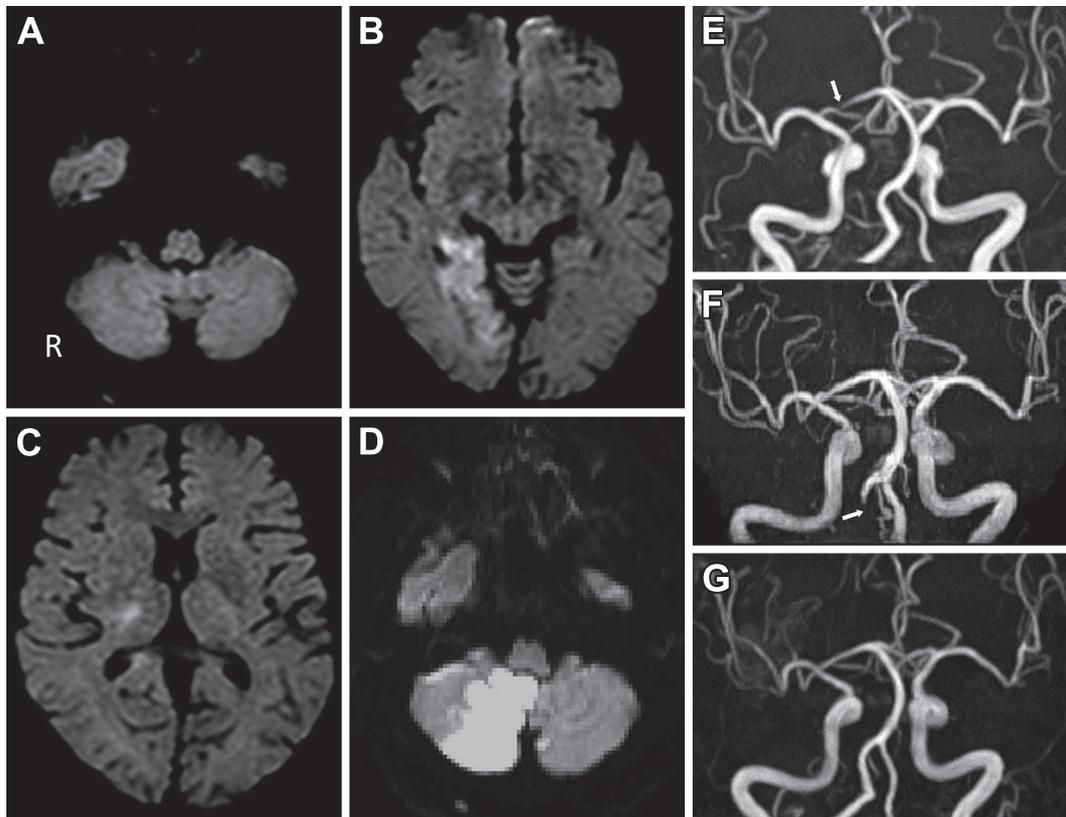


Fig. 1 Brain MR diffusion-weighted imaging (DWI) and angiography (MRA) on Day 1, 9, and 39.

Axial DWIs and MRA on Day 1 revealed acute cerebral infarction at the right temporoparietal lobe and the right thalamus with occlusion at the ambient segment (arrow) of the right posterior cerebral artery (A–C, E). Axial DWI on Day 9 demonstrated a recurrent infarction in the right cerebellum (D). MRA on Day 9 did not depict the proximal vertebral artery on the right side (arrow, F), which was depicted again on Day 39 (G). The right posterior cerebral artery seemed to be recanalised until Day 9 (F).

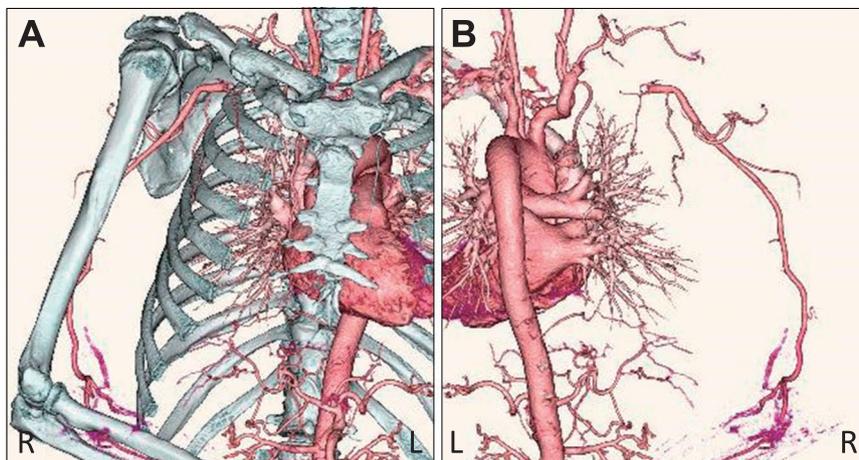


Fig. 2 3-dimensional CT angiography (3D-CTA) on Day 8.

Anteroposterior view clearly showed an ununited fracture of the right clavicle (A). The free end of the distal part was displaced backwards towards the right first rib, where a filling defect of the right subclavian artery was seen. Posteroanterior view (bone removal) detected a complete cutoff approximately 1 cm distal to the origin of the right vertebral artery, with refilling by collaterals in the axillary artery and the proximal part of the radial and ulnar arteries (B).

Table 1 Cases of stroke associated with compression of the subclavian artery.

Author (year)	Age/Sex	Cause (R: right, L: left)	Territory of stroke	Upper limb symptoms	Time from upper limb symptoms to stroke
Gould AP (1884) ⁵⁾	19/M	R bony mass	Anterior	+	3 years
Symonds CP (1927) ¹⁾	29/F	R cervical rib	Anterior	+	6 years
Symonds CP (1927) ¹⁾	20/F	R cervical rib	Anterior	+	2 years
Yates AG (1928) ⁶⁾	41/M	R fractured clavicle	Posterior	+	Several months
Hoobler SW (1942) ²⁾	38/M	R cervical rib	Anterior	+	2 years
Samiy E (1955) ⁷⁾	23/F	R cervical rib	Anterior	+	5 months
Shucksmith HS (1963) ⁸⁾	17/F	R cervical rib	Anterior	+	5 months
Davis JM (1966) ⁹⁾	19/M	R cervical rib	Anterior	+	6 months
De Villiers JC (1966) ¹⁰⁾	15/F	R cervical rib	Anterior	+	3 months
Eriksson I (1968) ¹¹⁾	43/M	R scalenus anterior	Anterior	+	3 weeks
Dick R (1970) ¹²⁾	15/F	R scalenus anterior	Anterior	+	3 months
Blank RH (1974) ¹³⁾	18/F	R cervical rib	Posterior	+	1 month
Prior AL (1979) ³⁾	35/M	R cervical rib	Anterior	+	2 months
Prior AL (1979) ³⁾	21/F	R cervical rib	Anterior	-	-
Prior AL (1979) ³⁾	38/M	L cervical rib	Posterior	+	3 years
Fields WS (1986) ⁴⁾	30/M	R repetitive violent throwing motion	Anterior and posterior	+	3 months
al-Hassan HK (1988) ¹⁴⁾	28/M	R cervical rib	Anterior	+	6 years
al-Hassan HK (1988) ¹⁴⁾	36/M	R cervical rib	Anterior	+	12 years
Bearn P (1993) ¹⁵⁾	41/M	R cervical rib	Anterior	+	2 years
Nishibe T (2000) ¹⁶⁾	48/F	R cervical rib	Anterior	-	—
Matsen SL (2003) ¹⁷⁾	19/F	R cervical rib	Posterior	+	3 months
Naz I (2006) ¹⁸⁾	18/M	R cervical rib	Anterior	+	6 months
Lee TS (2007) ¹⁹⁾	15/F	R cervical rib	Anterior	+	3 months
Yamaguchi R (2008) ²⁰⁾	22/M	L first rib anomaly	Posterior	+	5 months
Goonerantne IK (2009) ²¹⁾	21/M	R cervical rib	Posterior	+	1 month
Sharma S (2010) ²²⁾	18/M	R cervical rib	Anterior	-	—
Kataria R (2012) ²³⁾	14/F	R cervical rib	Anterior and posterior	-	—
Jusufovic M (2012) ²⁴⁾	49/M	R cervical rib	Anterior and posterior	+	6 months
Kalita J (2013) ²⁵⁾	14/M	R cervical rib	Anterior	+	2 months
Meumann EM (2014) ²⁶⁾	16/F	R cervical rib	Anterior	+	Several months
Chavali S (2014) ²⁷⁾	49/F	R displaced clavicle due to fractured manubrium	Anterior	-	—
Palaniandavan (2014) ²⁸⁾	27/F	R cervical rib	Anterior	+	1 week
Bains RD (2014) ²⁹⁾	12/M	Bilateral abnormal ribs	Posterior	+	Not described
Palmer OP (2015) ³⁰⁾	56/F	L cervical rib	Posterior	+	(Later)
present case	61/M	R fractured clavicle	Posterior	+	6 months

整を認めなかった。血管エコーでは、右鎖骨下動脈は鎖骨骨折部近傍で血栓により閉塞し、その近位側には可動性部分とともに to and fro の血流パターンを認めたため、ヘパリンを1万2000単位/日に増量した。しかしながら、翌第9病日に再び回転性めまいが出現し、頭部MRI拡散強調画像で右小脳半球に新たな高信号域を認めた (Fig. 1D)。MRAでは、右椎骨動脈近位部の描出不良と右後大脳動脈の再開通を認めた (Fig. 1F)。ヘパリンの用量を活性化部分トロンボプラスチン時間 (aPTT) が前値の1.5~2倍になるように調節したとこ

ろ (最大用量1万7千単位/日)、第39病日に一過性の右口周囲と右前腕に異常感覚が生じたが、頭部MRIでは新たな梗塞巣は認めず、MRAでは右椎骨動脈の再開通を認めた (Fig. 1G)。二次予防としてヘパリンからワルファリンへ置換し、第49病日に自宅へ退院した。左上四分盲、左半身の感覚障害が残したが、日常生活に支障はなく、以後3年半が経過するが、脳梗塞再発はない。血管エコーでの観察を継続しているが、右鎖骨下動脈は再開通を認めていない。

考 察

本症例では、偽関節となった右鎖骨骨折が右鎖骨下動脈を圧迫・閉塞し、盲端となった鎖骨下動脈内に生じた血栓の一部が逆行性に右椎骨動脈に流入することにより椎骨脳底動脈領域梗塞を繰り返したと考えられる。原因となった右鎖骨骨折は脳梗塞発症の35年前に生じたが、側副血行の発達や半年前から労作時疼痛が生じていた経過は、右鎖骨下動脈の閉塞性病変が進行して最終的に閉塞に至った可能性を示唆する。また、再発予防には抗凝固療法が有効であった。

鎖骨下動脈は、鎖骨・第一肋骨・斜角筋で形成される胸郭出口で圧迫を受けることがあり、本例のように上肢の運動時疼痛や脈拍低下、血圧低下などの虚血症状を来すものは動脈性胸郭出口症候群と呼ばれる。原因は、頸肋や第一肋骨の異常に伴うことが多いが、鎖骨骨折や、野球やクリケットの投手またはボートの漕手など、上肢の外転を繰り返すアスリートにも生じることがある⁴⁾。鎖骨下動脈の圧迫による狭窄とともに、繰り返す鈍的外傷による動脈損傷は狭窄・狭窄後拡張・瘤形成へと進展し、内腔に形成された血栓由来の遠位塞栓によって手指潰瘍・壊疽を生じることがある。本例では、第8病日に右橈骨動脈の触知が不能となったが、遠位塞栓の徴候は認められなかった。

鎖骨下動脈の圧迫により生じた血栓が脳梗塞を来すことは、頸肋の稀な合併症として古くから知られており、本例を含めてこれまで35例の症例報告がある (Table 1)^{1)~30)}、平均年齢は28歳で本例が最も高齢発症であった。原因は、頸肋などの骨格異常が8割を占め、鎖骨骨折に伴う脳梗塞は本例とYatesらの2例のみであった⁶⁾。彼らは、非癒合性の右鎖骨骨折を有する41歳女性が、数ヶ月前からの右上肢運動時痛と脱力に続いて脳梗塞を発症し、7日後に死亡した剖検例を報告した。右鎖骨骨折により圧迫された右鎖骨下動脈が、近位部にかけて癒着した器質化血栓により閉塞していたことから、脳底動脈に認められた塞栓子は、鎖骨下動脈内の血栓の断片が右椎骨動脈を上行したものであると推察している。同様の後方循環領域梗塞は左右いずれの鎖骨下動脈病変でも生じうるが³⁾²⁰⁾³⁰⁾、前方循環領域梗塞は、右鎖骨下動脈のみが右総頸動脈と共通して腕頭動脈から分岐するため、左病変では生じないとされる²⁾。過去の前方循環領域梗塞25例はいずれも右病変によるものであった。

本例では、右鎖骨下動脈の椎骨動脈分岐部は開通しており、血管エコーで認められた閉塞部の可動性血栓の一部が逆行性に右椎骨動脈に流入したことにより椎骨脳底動脈領域梗塞を繰り返したと考えられる。Priorらは、鎖骨下動脈血流をドブラエコーで解析し、鎖骨下動脈閉塞により形成された壁血栓が平均して5 cm逆流しうることを示した³⁾。鎖骨下動脈末梢の血栓が拡張期に総頸動脈や椎骨動脈起始部に運ばれ、収縮期にこれらに流入して脳梗塞を発症すると考えられている²¹⁾。鎖骨下動脈の機能的閉塞は、上肢の外転でも生じることが示されており¹¹⁾²²⁾²³⁾²⁶⁾、クリケットの投球⁹⁾²⁵⁾、ハンマーの使用¹¹⁾、咳発作³⁰⁾、あるいは睡眠中の上肢外転¹⁰⁾²⁶⁾が脳梗

塞発症の契機になったとする報告がある。

もう一つの特徴は、本例を含めて多くの例で脳梗塞発症に先行して手指や前腕の虚血症状が出現していることである。遠位上肢の症状から脳梗塞発症までは、数週間から12年までばらつきがあるが、上肢の虚血症状が重篤な脳梗塞の警告症状と考えれば、3D-CTAなどにより鎖骨下動脈の圧迫や狭窄を評価しておくことは重要と考えられる。また、保存的加療で改善しない場合は手術による圧迫除去や血行再建術を検討すべきである。

結 語

35年前の鎖骨骨折により発症した脳梗塞例を経験した。鎖骨骨折が脳梗塞の原因となることは稀であるが、脳梗塞が動脈性胸郭出口症候群に合併することは臨床上重要と考え報告した。

※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。

文 献

- 1) Symonds CP. Two cases of thrombosis of subclavian artery, with contralateral hemiplegia of sudden onset, probably embolic. *Brain* 1927;50:259-260.
- 2) Hoobler SW. The syndrome of cervical rib with subclavian arterial thrombosis and hemiplegia due to cerebral embolism — report of a case. *N Engl J Med* 1942;226:942-944.
- 3) Prior AL, Wilson LA, Gosling RG, et al. Retrograde cerebral embolism. *Lancet* 1979;314:1044-1047.
- 4) Fields WS, Lemak NA, Ben-Menachem Y. Thoracic outlet syndrome: review and reference to stroke in a major league pitcher. *Am J Roentgenol* 1986;146:809-814.
- 5) Gould AP. A case of spreading obliterative arteritis. *Trans Clin Soc London* 1884;17:95-104.
- 6) Yates AG, Guest D. Cerebral embolism due to an ununited fracture of the clavicle and subclavian thrombosis. *Lancet* 1928;212:225-226.
- 7) Samiy E. Thrombosis of the internal carotid artery caused by a cervical rib. *J Neurosurg* 1955;12:181-182.
- 8) Shucksmith HS. Cerebral and peripheral emboli caused by cervical ribs. *Br Med J* 1963;2:835-837.
- 9) Davis JM, Golinger D. Cervical rib, subclavian artery aneurysm, axillary and cerebral emboli. *Proc R Soc Med* 1966;59:1002-1004.
- 10) De Villiers JC. A brachiocephalic vascular syndrome associated with cervical rib. *Br Med J* 1966;2:140-143.
- 11) Eriksson I, Hierton T. The brachiocephalic vascular syndrome. *Acta Chir Scand* 1968;134:93-97.
- 12) Dick R. Arteriography in neurovascular compression at the thoracic outlet, with special reference to embolic patterns. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 1970;110:141-147.
- 13) Blank RH, Connar RG. Arterial complications associated with thoracic outlet compression syndrome. *Ann Thorac Surg* 1974;17:315-324.

- 14) al-Hassan HK, Abdul Sattar M, Eklof B. Embolic brain infarction: a rare complication of thoracic outlet syndrome. A report of two cases. *J Cardiovasc Surg (Torino)* 1988;29:322-325.
- 15) Bearn P, Patel J, O'Flynn WR. Cervical ribs: a cause of distal and cerebral embolism. *Postgrad Med J* 1993;69:65-68.
- 16) Nishibe T, Kunihara T, Kudo FA, et al. Arterial thoracic outlet syndrome with embolic cerebral infarction. Report of a case. *Panminerva Med* 2000;42:295-297.
- 17) Matsen SL, Messina LM, Laberge JM, et al. SIR 2003 film panel case 7: arterial thoracic outlet syndrome presenting with upper extremity emboli and posterior circulation stroke. *J Vasc Interv Radiol* 2003;14:807-812.
- 18) Naz I, Sophie Z. Cerebral embolism: distal subclavian disease as a rare etiology. *J Pak Med Assoc* 2006;56:186-188.
- 19) Lee TS, Hines GL. Cerebral embolic stroke and arm ischemia in a teenager with arterial thoracic outlet syndrome: a case report. *Vasc Endovascular Surg* 2007;41:254-257.
- 20) Yamaguchi R, Kohga H, Kurosaki M, et al. Acute basilar artery occlusion in a patient with left subclavian artery occlusion due to first rib anomaly: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2008;48:355-358.
- 21) Gooneratne IK, Gamage R, Gunarathne KS. Pearls & oysters: distal subclavian artery: a source of cerebral embolism. *Neurology* 2009;73:e11-12.
- 22) Sharma S, Kumar S, Joseph L, et al. Cervical rib with stroke as the initial presentation. *Neurol India* 2010;58:645-647.
- 23) Kataria R, Sharma A, Srivastava T, et al. Cervical rib, a rare cause of recurrent stroke in the young: case report. *Neurologist* 2012;18:321-323.
- 24) Jusufovic M, Sandset EC, Popperud TH, et al. An unusual case of the syndrome of cervical rib with subclavian artery thrombosis and cerebellar and cerebral infarctions. *BMC Neurol* 2012; 12:48.
- 25) Kalita J, Kumar P, Misra UK. Cervical rib resulting in amaurosis fugax and stroke. *Clin Neurol Neurosurg* 2013;115:2388-2389.
- 26) Meumann EM, Chuen J, Fitt G, et al. Thromboembolic stroke associated with thoracic outlet syndrome. *J Clin Neurosci* 2014; 21:886-889.
- 27) Chavali S, Shukla U, Chauta S. Traumatic subclavian arterial thrombosis presenting with cerebral infarct--a case report. *Heart Lung Circ* 2014;23:e202-e206.
- 28) Palaniandavan, Hafeezullah S, Raghav J, et al. An interesting case of young stroke. *World Journal of Medical Sciences* 2014; 10:275-278.
- 29) Bains RD, Platt J, MacGregor D, et al. Atypical thoracic outlet syndrome and reverse flow thromboembolism. *Pediatr Neurol* 2014;51:453-456.
- 30) Palmer OP, Weaver FA. Bilateral cervical ribs causing cerebellar stroke and arterial thoracic outlet syndrome: a case report and review of the literature. *Ann Vasc Surg* 2015;29:840. e1-e4.

Abstract

Vertebrobasilar territory embolisms due to the ununited fracture of the right clavicle from 35 years ago

Shiori Ogura, M.D.¹⁾, Eijirou Tanaka, M.D.¹⁾, Shinji Ashida, M.D.¹⁾,
Keiko Maezono, M.D.¹⁾ and Yoshinari Nagakane, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Kyoto Second Red Cross Hospital

A 61-year-old man, with a history of right clavicular fracture 35 years prior, visited our hospital due to the sudden onset of vertigo and tinnitus following weakness and numbness in his left arm and leg. He also had a 6-month history of right arm pain with overuse. Brain MRI showed acute brain infarcts in the right posterior cerebral artery territory. Intravenous alteplase was administered 188 minutes after onset. Although heparin infusion was commenced on day 2, he had vertigo again on day 9, and MRI showed a recurrent brain infarct in the right posterior inferior cerebellar artery territory. Ultrasound examination revealed occlusion of his right subclavian artery beneath the old right clavicular fracture as well as mobile thrombus in the proximal portion of the right subclavian artery. We speculated that a pseudarthrosis at the site of the old right clavicular fracture had repetitively pressed the right subclavian artery. Subsequently, we considered thrombi, which had developed in the proximal portion of the right subclavian artery, migrated into the right vertebral artery, causing recurrent emboli in the vertebrobasilar artery territory.

(*Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol)* 2018;58:631-635)

Key words: brain infarction, embolism, subclavian artery occlusion, clavicle fracture, thoracic outlet syndrome