

倉敷 佳孝¹⁾ 花岡 真実²⁾ 佐藤 浩一²⁾ 佐藤 裕一¹⁾
 松崎 和仁¹⁾ 蔭山 彩人¹⁾ 三宅 一¹⁾ 仁木 均³⁾

1) 徳島赤十字病院 脳神経外科
 2) 徳島赤十字病院 脳神経血管内治療科
 3) 徳島赤十字病院 脳神経内科

要 旨

【背景】大規模臨床研究における心原性脳塞栓症に対する血栓回収術の有効性は高いが、ある程度の頻度で発生する合併症の報告も集積されつつある。今回我々は、血栓回収術中に生じた direct CCF (carotid cavernous fistula) を生じた 1 例を経験したので報告する。

【症例】僧帽弁置換術後の 87 歳女性。術後 4 日目に突然左片麻痺をきたし、右中大脳動脈塞栓症と診断され当科に紹介された。Trevor XP による血栓回収術を試みたが、血管の蛇行屈曲により操作は難渋した。一時血管壁にとらわれた状態となり、デバイスそのものが回収困難となったが、なんとか引き下ろすと、direct CCF が生じていた。病変血管の再開通も得られなかったが、CCF からの流出路は脳静脈への逆流は生じておらず、手技を終了した。左片麻痺は改善せず梗塞範囲も広範囲となったが、状態は数日で安定し、血管雑音以外の CCF の症状は顕著でなく、抗凝固療法を追加してリハビリ転院（手技から 27 日目）した。血管雑音は継続し、手技から 4 か月後に右目の眼球突出、結膜充血、右外転神経麻痺が明瞭となり再入院した。CCF は右内頸動脈の血流を全て steal し著明な RLVD (retrograde leptomeningeal venous drainage) を認めた。経動脈的にマイクロカテーテルをシャント直後の cavernous sinus に挿入し、コイル塞栓術を施行した (Target Sinus TAE)。AV shunt はほぼ消失し、CCF の症状も消失した。

【結語】内頸動脈に著明な血管蛇行を認めた場合、ステントレトリバーでの血栓回収時に血管の引き抜き損傷による direct CCF を生じる危険性があり注意を要する。

キーワード：MCA embolism, thrombectomy, stent retriever, direct CCF, RLVD

背 景

大規模臨床研究において心原性脳塞栓症に対する血栓回収術の有効性は高いが、ある程度の頻度で発生する合併症の報告も集積されつつある。

今回、我々は中大脳動脈血栓回収術中に生じた direct CCF の 1 例を経験したので報告する。

症 例

【症 例】87 歳、女性。

【主 訴】構音障害、左片麻痺

【現病歴】

当院心臓血管外科にて僧帽弁閉鎖不全症に対して僧

帽弁置換術、三尖弁輪縫縮術、心房中隔欠損閉鎖術を施行され、術後 2 日目に心房細動をきたしワーファリンが開始された。術後 4 日目に突然、構音障害、左片麻痺をきたし、MRI にて右島皮質などに急性期脳梗塞と右中大脳動脈閉塞を認め当科紹介となった。

【現 症】

意識レベルは GCS：E4V4M6 で、構音障害、左不全片麻痺 MMT 2/V (NIHSS：10 点) を認めた。

【M R I】

DWI にて、右島皮質、被殻、放線冠の一部に淡い高信号域を認め (DWI-ASPECTS：8 点)、T2*WI では、右中大脳動脈 M1 部に血栓像を疑わせる susceptibility sign を認め、MRA では、右 M1 部末梢以降の描出不良を認めた (図 1)。

【経 過】

経過および画像所見より心原性脳塞栓症と診断し、DWI/MRA mismatchありと判断した。PT-INR：1.99、開心術後4日後であるため、t-PA 静注療法は禁忌であり、緊急に血栓回収療法を行った。

【血栓回収療法】

無名動脈は低位分岐で、右内頸動脈起始部とサイ

フォン部（特にC4部）に屈曲があり、一部にはアコーディオン形状もみられ、カテーテル操作に難渋した(図2)。

右M1閉塞を認めたため、9F OPTIMOを右内頸動脈起始部に誘導し、Trevor Pro18を右M1遠位部に、ACE 60をC4部まで誘導し、サンドイッチ撮影で右M1に血栓があることを確認し、Trevor XP ProVue 4mm*20

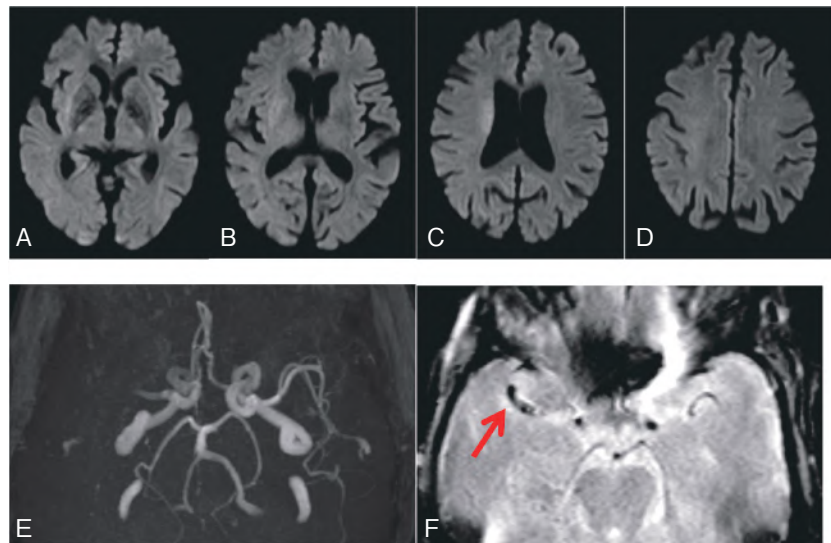


図 1

(A-D) DWI にて右島皮質，被殻，放線冠に淡い高信号域を認める
(E) MRA では右中大脳動脈 M1部閉塞を認める
(F) T2*WI にて右 M1部に susceptibility sign を認める



図 2

(A) 大動脈撮影にて、無名動脈は低位分岐であった
(B, C) 右頸動脈撮影にて、右内頸動脈起始部狭窄とサイフォン部（特にC4部）に高度の屈曲を認めた

mmを同部位で展開し、部分再開通が得られた(図3)。

ACE60を右内頸動脈終末部付近まで誘導しOPTIMOをinfalteしてからTrevo XP ProVueを回収しようとしたが(図4A, B), Trevo XPがM1近位部~C4部に引っ掛かった状態となった(図4C, D)。OPTIMOをdeflateしてOPTIMOごと引くことでなんとかTrevoを回収できたが、血栓がM1近位部に移動し再閉塞した。2パス目はACEなしでTrevo XPをM1で再度展開し回収しようとしたが、M1近位部~C3部で引っ掛かり、次にC4~C3部に移動するも動かなくなり(図4E-G), OPTIMOをdeflateしてOPTIMOごと引き抜くことでなんとかTrevoを回収できた。

しかし右M1閉塞のままdirect CCFを生じてしまい、ACAからのleptomenigeal anastomosisが低下した(図

5)。右MCAにPLOWRERを挿入したが、REVIVEはサイフォン部を通過できず、血栓回収手技は断念した。次にPLOWRERをScepterに交換し、CCFのshunting point(C4部)に誘導し5分間遮断したがshunt閉塞できなかった。CCFは明らかなSOVや皮質静脈への逆流は生じておらず、順行性の血流およびsphenoparietal sinus~板間静脈への血流となっており追加治療は行わず手技を終了した。

【術後経過①】

左片麻痺は改善せず梗塞範囲も広範囲となった(図6)。状態は数日で安定し、右眼窩周囲の血管雑音以外にCCFの症状は顕著でなく、抗凝固療法を追加して、血管内治療から27日目にリハビリ病院へ転院した。血管雑音は継続し、手技から4か月後に右目の眼球突出、結膜充血、右外転神経麻痺が明瞭となり、CCFに対する加療目的に再入院した。

【direct CCFに対するTarget Sinus TAE】

右内頸動脈C4外側向きに海綿静脈洞内側部への瘻孔あり、血流の大半をCCFに盗られることで、右MCA, ACAはほとんど描出されなかった。前回の手技終了時に認めたSphenoparietal sinusへの逆流は認めなくなっており、著明な皮質静脈逆流を認めた。また、uncal veinからbasal vein, straight sinusへのdrainage, SOV, IOVへの逆流, IPSからIJVへのdrainageを認めた(図7A-D)。

瘻孔直後に5mm大のvenous sac様の部分があり(図7E)、経動脈的に同部位をコイル塞栓することとした(Target Sinus TAE)。ただし、瘻孔部へのアクセスはかなりの屈曲病変なので、バルーンアシスト、TVEの準備もしてから、Transend EX platinumでSL-10を経動脈的に瘻孔部へと誘導した。

コイルを4本目まで挿入して行った3D-RAでは、内頸動脈内へのコイル逸脱がないことを確認した(図7F)。14本目でSL-10がkick backされ、このときの撮影にて、シャントの大半は消失し皮質静脈逆流も消失しており、IPSを経由してIJVに灌流するのみとなり、右MCAの描出も改善したので、手技をここで終了した(図8)。

【術後経過②】

術直後からCCFの症状(右眼窩周囲の血管雑音、右眼球突出や充血、右外転神経麻痺)は改善したが、脳梗塞後遺症(左片麻痺)は改善なく、術後3日目に元のリハビリ病院へ転院した。

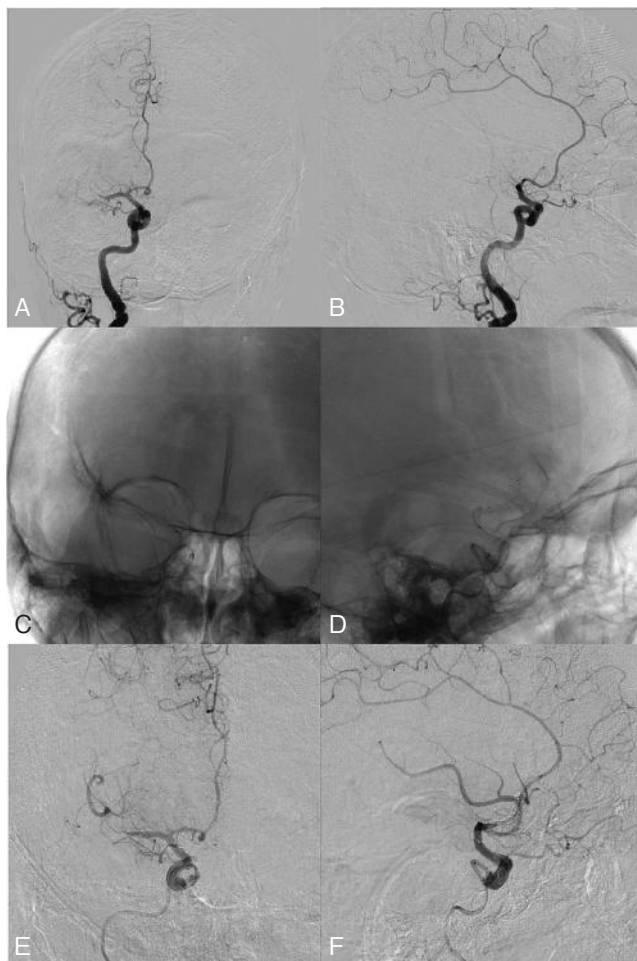


図3

(A, B) 右頸動脈撮影にて、右M1閉塞を認めた
(C-F) Trevo XP ProVue 4mm*20mmを右M1で展開すると部分再開通が得られた

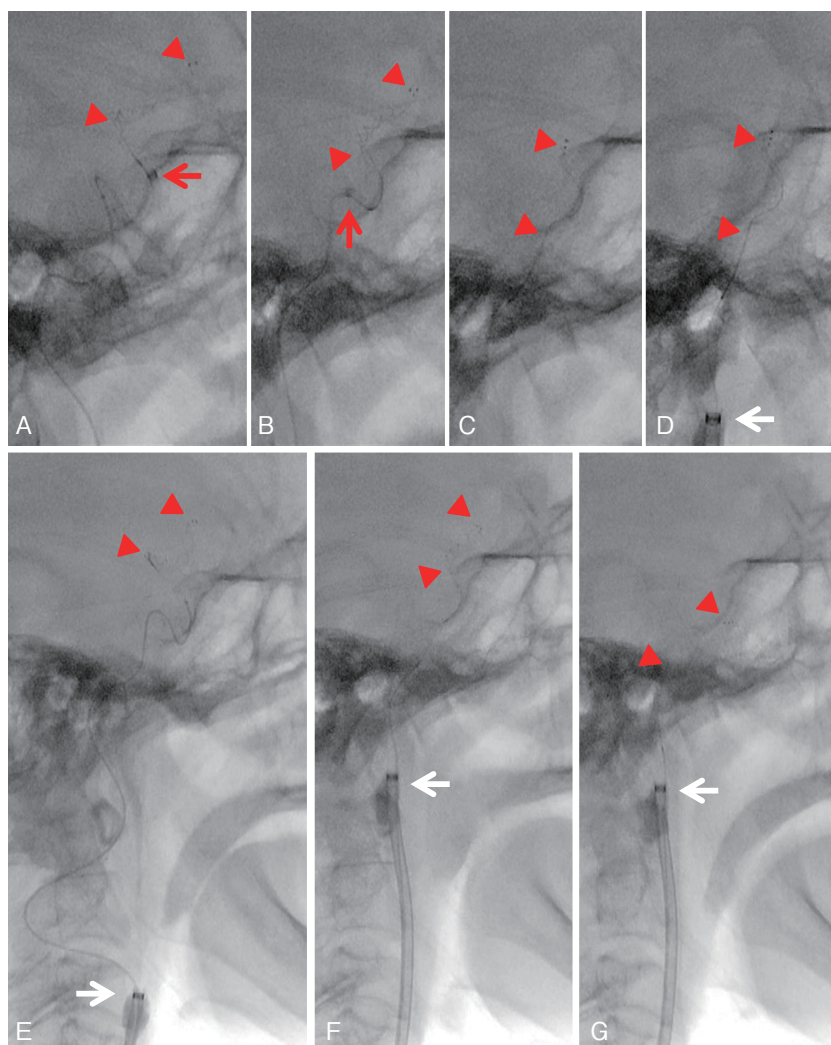


図 4

(A-D) : 1 パス目 (ACE60あり)

(A, B) ACE60を右内頸動脈終末部付近まで誘導し OPTIMO を infalte してから Trevo XP ProVue を血栓ごと回収しようとして引き込んできている

(C, D) Trevo XP が M1近位部～C4部に引っ掛かり動かなくなり, ACE60 を抜去して Trevo XP を引っ張るも, OPTIMO が逆に引き上げられている

(E-G) : 2 パス目 (ACE60なし)

Trevo XP を M1で再度展開し回収しようとしたが, M1近位部～C3部で引っ掛かり, 次に C4～C3部に移動するも動かなくなり, OPTIMO が逆に引き上げられている

(▶ : Trevo XP ProVue, ▲ : ACE60, ⇐ : OPTIMO)

考 察

大規模臨床試験において, ステントレトリバーによる血栓回収術周術期の合併症率は, 症候性頭蓋内出血は1.0～7.6%で, その際の死亡率は63%で予後良好

例は25%とも報告されている^{1), 2)}.

Leishangthem らは, 頭蓋内出血を起こしてプロタミンと低血圧管理にて止血し良好な転機を辿った報告をしている³⁾が, Misaki らは, 標的血管に仮性動脈瘤が形成され, 一旦止血されるものの8時間後に再出血し, 外科的止血を行った報告をしており⁴⁾, いずれも

Trevo XP ProVue 使用時に起こっている。

我々が渉猟し得た限り、direct CCFを生じた報告は本症例が2例目と稀ではあるが、Matsumotoらは自験例と同様に、内頸動脈の屈曲蛇行が強い中大脳動脈塞栓症にTrevo XP ProVueを使用し、回収時の引き抜き損傷でC4部にdirect CCFを起こしたと報告している⁵⁾。彼らは、回収時にTrevo XP ProVueが引っ掛かり、delivery wireが直線化してguiding catheterが遠位側へ引き上げられる現象が生じたと報告しており、本症例もまったく同様の所見を呈していることから、内頸動脈の屈曲蛇行が強い症例では、引き抜き損傷によるCCFが生じ得ると考えられた。

Trevo XP ProVueはナイチノール性自己拡張ステントにプラチナ・タングステン合金ワイヤーが巻き付いている。

ゴム管を血管に見立ててTrevo XP ProVueを引き抜くと、直線状態のゴム管においては問題ないが、45度屈曲のゴム管ですでに引き抜き困難となった。他社製のステントレトリバーでは問題なかったため、内頸動脈の屈曲蛇行が強い症例においては、他社製のステントレトリバーを第一選択としてもよいと思われる。

Matsumotoらは、血管蛇行の強い症例における引き抜き損傷を予防する対策として、①中間カテーテルの使用、②マイクロカテーテルを再度前進させてステントレトリバーを部分的あるいはすべて回収、③ステントレトリバーを部分的に展開、④ステントレトリバーではなく最初から吸引装置を選択すること、

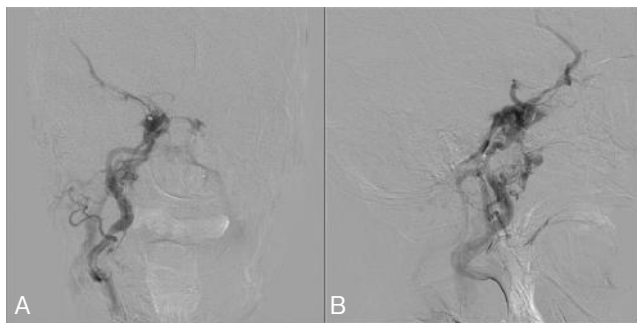


図5

2パス目の後も右MCAの再開通は得られず、CCFを認めた。CCFはSOVや皮質静脈への明らかな逆流を生じておらず、主にはIPSやbasilar venous plexusへの順行性血流とsphenoparietal sinus～板間静脈への血流であった

をあげている⁵⁾。

本症例において、ステント・血栓の回収時に引っ掛かった際に、②のマイクロカテーテルを再度前進させること、を試すべきであったと考えられた。

結 語

内頸動脈に著明な血管蛇行を認めた場合、ステントレトリバーでの血栓回収時に血管の引き抜き損傷によるCCFを生じる危険性があり注意を要する。

利益相反

本論文に関して、開示すべき利益相反なし。

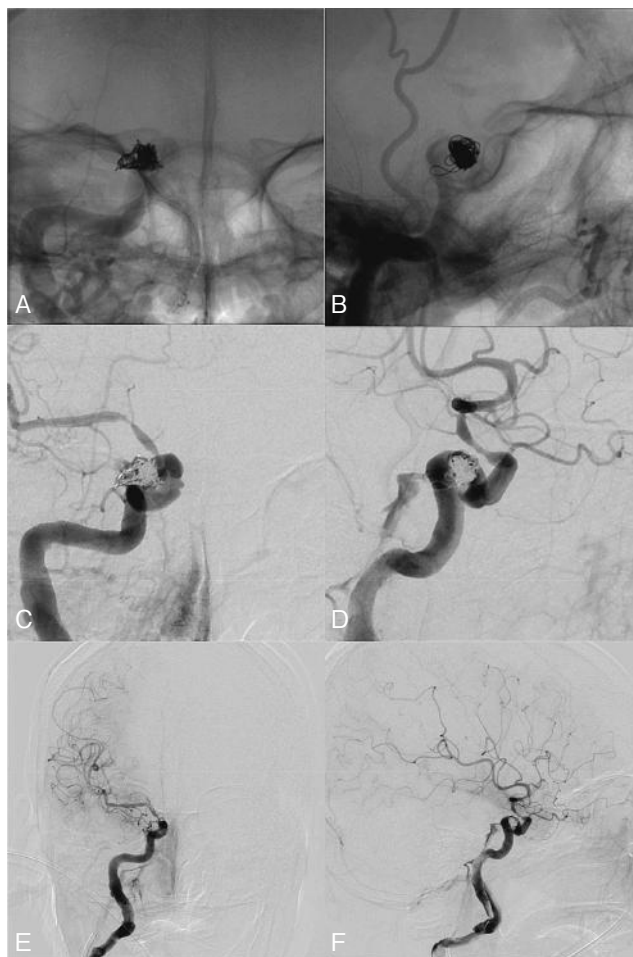


図8

AVシャント部分は経動脈的に海綿静脈洞の後半部分のみを塞栓することで(Target Sinus TAE)、皮質静脈逆流は消失し、右中大脳動脈への血流も認めるようになった

文 献

- 1) Gasco G, Lobotesis K, Machi P, et al: Stent retrievers in acute ischemic stroke: Complications and failures during the perioperative period. AJNR 2014 ; 35 : 734-40
- 2) Mokin M, Fargen KM, Primiani CT, et al: Vessel perforation during stent retriever thrombectomy for acute ischemic stroke: technical details and clinical outcomes. J Neurointerv Surg 2017 ; 9 : 922-8
- 3) Leishangthem L, Satti SR, et al: Vessel perforation during withdrawal of Trevo ProVue stent

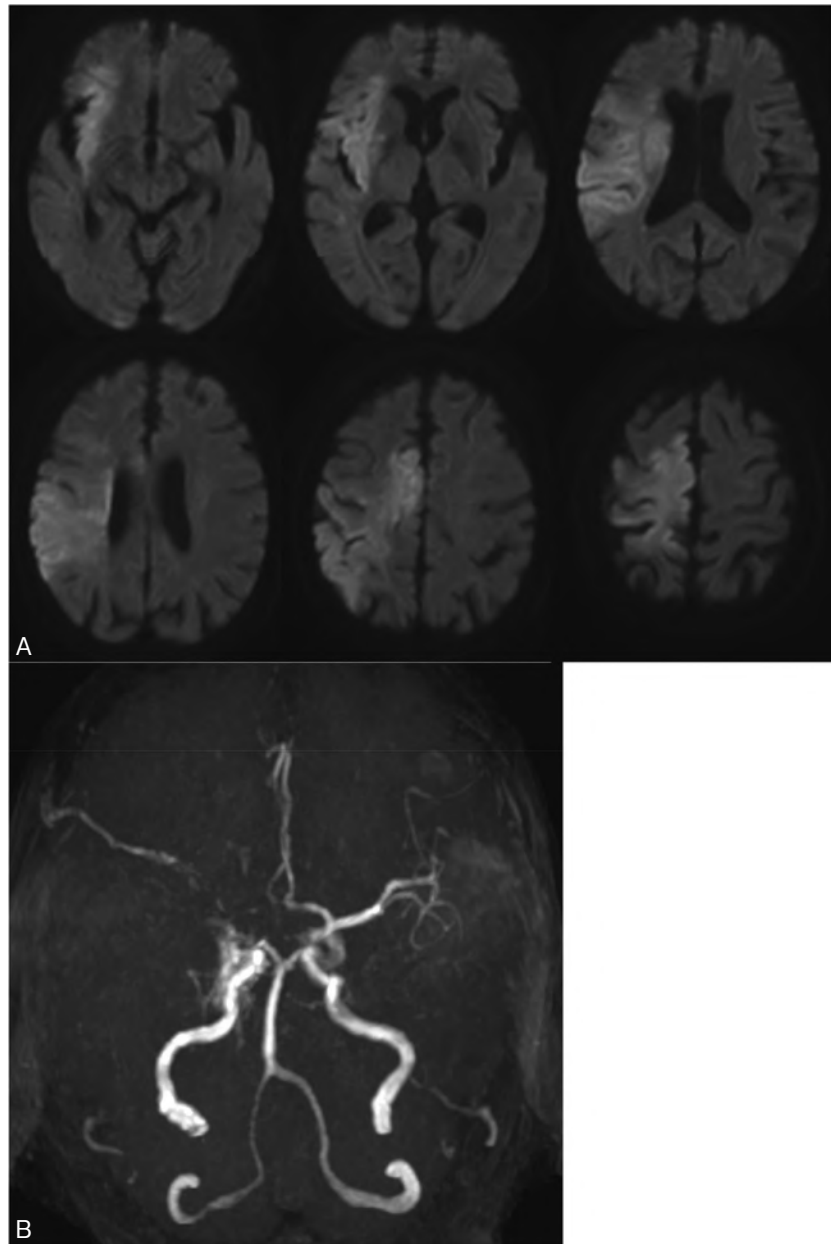


図 6

- (A) 血栓回収術後, DWI にて右中大脳動脈および前大脳動脈領域に梗塞巣は拡大していた
 (B) MRA では, 右 M1閉塞のままで右 CCF と板間静脈への逆流を認めた

retriever during mechanical thrombectomy for acute ischemic stroke. J Neurosurg 2014 ; 121 : 995 – 8

4) Misaki K, Uchiyama N, Mohri M, et al: Pseu-

doaneurysm formation caused by the withdrawal of a Trevo ProVue stent at a tortuous cerebral vessel: a case report. Acta Neurochir 2016 ; 158 : 2085 – 8

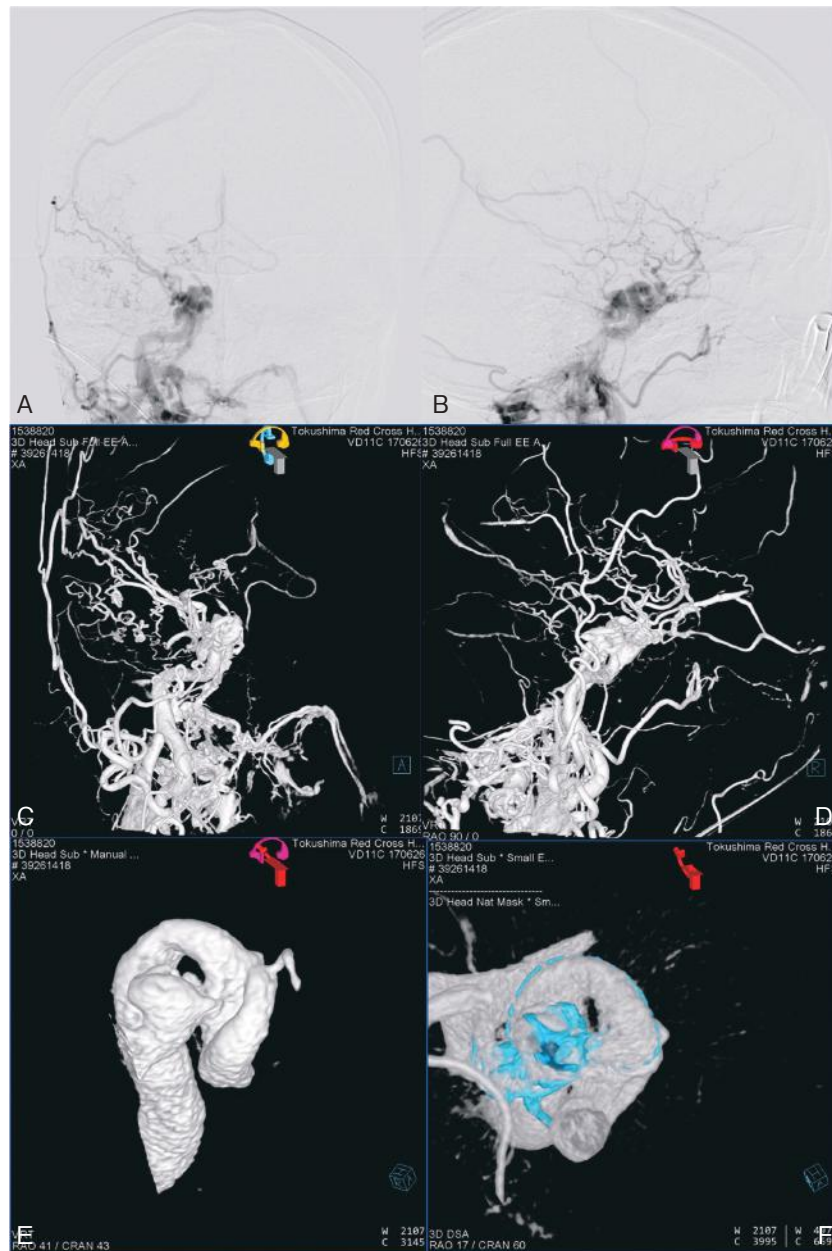


図 7

(A－D)血栓回収術 4 ヶ月後の右頸動脈撮影にて，superficial middle cerebral vein, superior ophthalmic vein, internal ophthalmic vein, uncus vein, inferior petrous sinus への逆流を認めた

(E) 3D－RA では，瘻孔部は右内頸動脈海綿静脈洞部後半部分に認めた

(F) 経動脈的に海綿静脈洞のコイル塞栓を行い，内頸動脈へのコイル逸脱は認めていない

5) Matsumoto H, Nishiyama H, Takemoto H, et al: Carotid-cavernous fistula caused by vessel injury while withdrawing a stent retriever dur-

ing mechanical thrombectomy for acute ischemic stroke. JNET 2018 ; 12 : 235 – 40

Occurrence of direct carotid-cavernous fistula during mechanical thrombectomy for middle cerebral artery occlusion

Yoshitaka KURASHIKI¹⁾, Mami HANAOKA²⁾, Koichi SATO²⁾, Yuichi SATO¹⁾,
Kazuhito MATSUZAKI¹⁾, Ayato KAGEYAMA¹⁾, Hazimu MIYAKE¹⁾, Hitoshi NIKI³⁾

1) Division of Neurosurgery, Tokushima Red Cross Hospital

2) Division of Neuro-Endovascular Surgery, Tokushima Red Cross Hospital

3) Division of Neurology, Tokushima Red Cross Hospital

【Abstract】

Background: Thrombectomy for cardiogenic cerebral embolism in large-scale clinical studies is highly effective, but reports of complications are regularly accumulating. Here, we report a case of a direct carotid-cavernous fistula (CCF) that occurred during a thrombus retrieval operation.

Case presentation: The patient was an 87-year-old woman who underwent mitral valve replacement surgery. Sudden left hemiplegia occurred on the fourth day after surgery, and she was diagnosed with right middle cerebral artery embolism and referred to our department. We attempted thrombus recovery using Trevo XP, but the operation proved to be difficult due to serpentine flexion of the blood vessel. Due to the entrapment by the temporary blood vessel wall, the device itself became difficult to retrieve; however, when it was finally retracted, direct CCF occurred. Although re-opening of the lesion vessel was not achieved, the outflow path from the CCF showed no reflux to the cerebral vein, and the procedure was terminated. The left hemiplegia did not improve and the infarction range was wide, but the condition stabilized in a few days. The symptoms of CCF other than blood vessel noise were not conspicuous. Anticoagulation therapy was started, and the patient was transferred for rehabilitation 27 days from the procedure. Blood vessel noise continued four months after the procedure. When right proptosis, right conjunctival hyperemia, and right abducens nerve paralysis became apparent, she was re-hospitalized. CCF stole the blood flow of the right internal carotid artery, and a remarkable retrograde leptomeningeal venous drainage was recognized. Transarterial insertion of the microcatheter into the cavernous sinus was performed immediately after the shunt and coil embolization surgery was performed (Target Sinus TAE). The AV shunt almost disappeared along with the symptoms of CCF.

Conclusion: When the internal carotid artery shows remarkable blood vessel meandering, a danger of direct CCF exists due to pullout of the blood vessel while collecting the thrombus at the stent retriever, which requires caution.

Key words: MCA embolism, thrombectomy, stent retriever, direct CCF, RLVD

Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal 24:82–90, 2019
