

頸部内頸動脈の線維筋性形成異常症に起因した 左中大脳動脈塞栓症の1例

池田典生 阿美古 将 坂倉孝紀 中野茂樹 西崎隆文

A case of the left middle cerebral artery embolism due to fibromuscular dysplasia in the cervical internal carotid artery

Norio IKEDA Masaru ABIKO Takanori SAKAKURA Shigeki NAKANO Takafumi NISHIZAKI

Department of Neurosurgery, Ube Industries Central Hospital

●Abstract●

Objective: We report a rare case of left middle cerebral artery embolism due to fibromuscular dysplasia (FMD) in the cervical internal carotid artery.

Case presentation: A 47-year-old female presented with motor aphasia and right hemiparesis. MRI showed early ischemic changes in the left frontal lobe and insular cortex. Cervical MRA showed irregularity of the vessel wall in the left cervical internal carotid artery and occlusion of the left middle cerebral artery (MCA). Because the patient was ineligible for intravenous recombinant tissue plasminogen activator, we chose endovascular therapy for recanalization. A left common carotid angiogram demonstrated typical findings of FMD and occlusion extending from the distal M1 to M2 segment of the MCA. Therefore, we performed balloon catheter disruption of the thrombus without thrombectomy using a Merci retriever. The occluded MCA was successfully recanalized and good clinical outcome was obtained.

Conclusion: We considered that the left MCA occlusion was caused by artery-to-artery embolism derived from FMD. This is the first report of balloon catheter disruption of the thrombus due to FMD.

●Key Words●

fibromuscular dysplasia, middle cerebral artery embolism, percutaneous transluminal angioplasty

宇部興産中央病院 脳神経外科

(Received January 5, 2012 : Accepted May 8, 2012)

<連絡先: 池田典生 〒755-0151 山口県宇部市大字西岐波 750 E-mail: ikedanor@orange.ocn.ne.jp >

緒言

線維筋性形成異常症 (fibromuscular dysplasia; FMD) は、腎動脈や頭頸部動脈など中小動脈の、主に中膜に変化を伴う原因不明の非動脈硬化性、非炎症性血管病変で、腎動脈に好発することから腎動脈狭窄による腎性高血圧の原因としてよく知られている³⁾。腎動脈に次いで頸部内頸動脈に多く、厚生省特定疾患調査研究班によるFMDの診断の手引きによれば、脳血管撮影にて第2頸椎を中心として0.5 cm~6.0 cmの範囲で、典型的にはOsbornら⁹⁾の分類のtype1の念珠状 (string of beads) の病変 (交互にみられる内腔の狭窄と拡張) が認められ、この所見が認められれば確診となる⁴⁾。頸部内頸動脈病

変による虚血性事象の発生機序として血管狭窄に伴う血流不全、血管壁の不整や乱流による血栓由来の塞栓、中膜解離による血管閉塞が挙げられるが¹⁾、本邦において頸部内頸動脈のFMDに起因した急性期脳梗塞に対して脳血管内手術を行った報告は稀で^{2,11,12)}、また中大脳動脈の急性閉塞発症例は1例のみと極めて稀である²⁾。今回我々は頸部内頸動脈のFMDに起因した左中大脳動脈塞栓症の1例を経験したので報告する。

症例呈示

症例: 47歳, 女性。

主訴: 失語症, 右片麻痺。

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし。

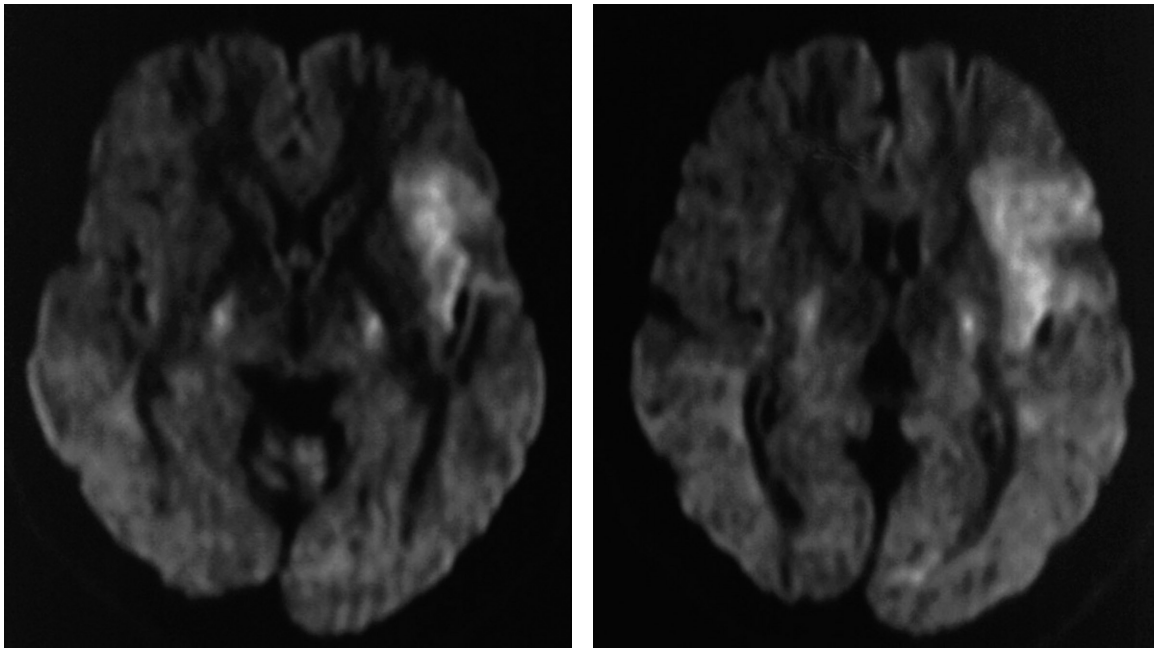


Fig. 1
Diffusion-weighted MRI shows early ischemic changes in the left frontal lobe and insular cortex.

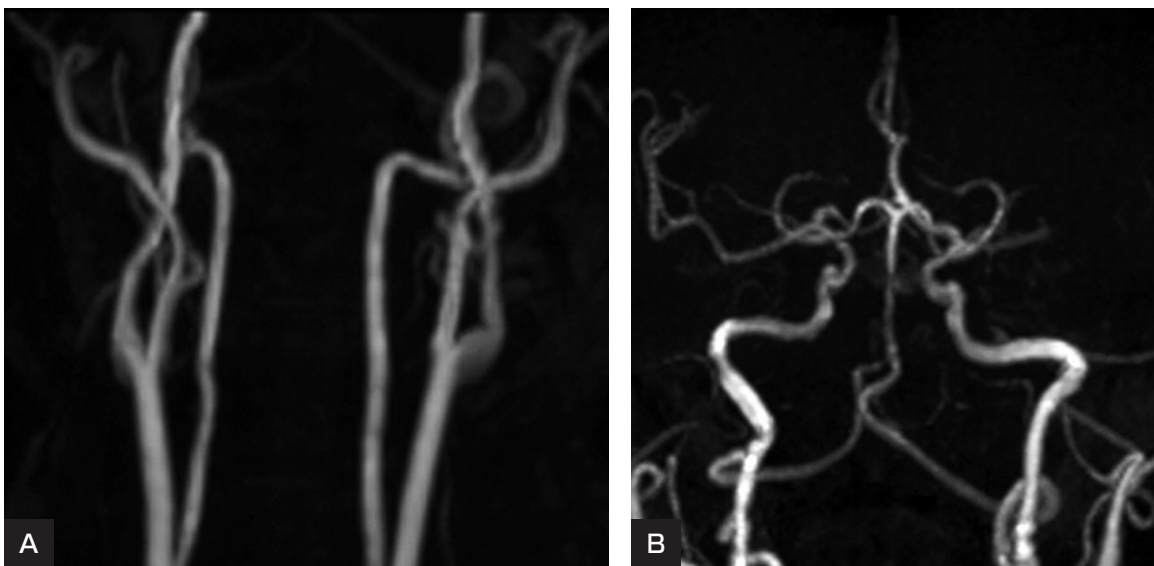


Fig. 2
A : Cervical MRA shows irregularity of the vessel wall in the left cervical internal carotid artery.
B : Intracranial MRA shows occlusion of the left middle cerebral artery.

現病歴：2011年5月18日仕事中に突然右上下肢の脱力と発語障害が出現し搬送受診となった。

神経学的所見：受診時意識レベルJCS 2，右片麻痺（上肢MMT2/5，下肢MMT1/5），運動性失語，ゲルストマン症候群を認め，NIHSS 15点であった。心房細動を含め心電図異常なく，血液生化学検査でも異常所見を認

めなかった。

神経放射線学的所見：頭部CTで異常所見を認めず，MRI拡散強調画像にて左前頭葉・島皮質に高信号域を認め（Fig. 1），頸部MRAにて左頸部内頸動脈の壁不正（Fig. 2A），頭部MRAにて左中大脳動脈閉塞を認めた（Fig. 2B）。

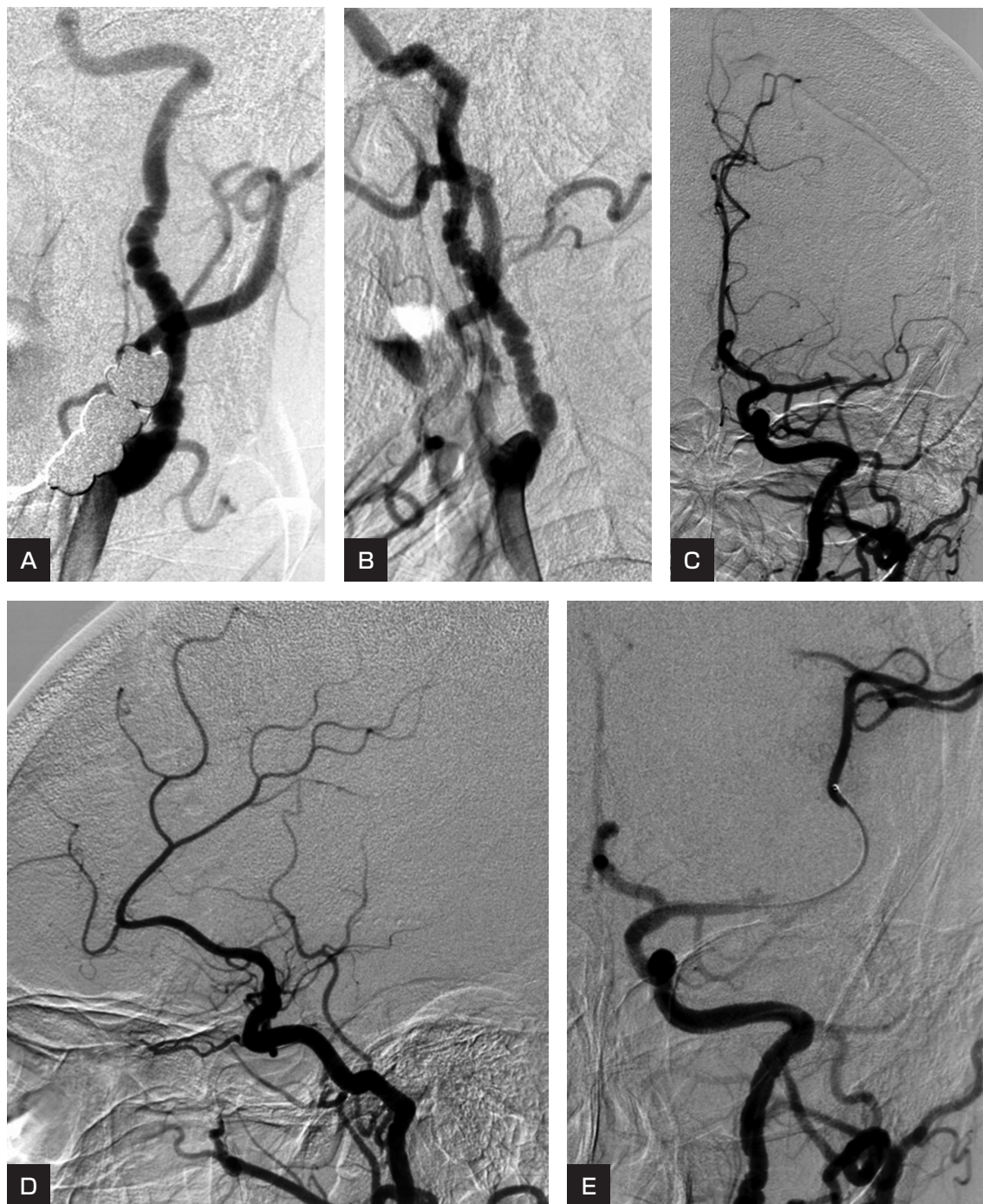


Fig. 3
Left common carotid angiogram demonstrates a typical finding of FMD (A: A-P view, B: lateral view) and occlusion of the left middle cerebral artery (C: A-P view, D: lateral view). E: Left middle cerebral artery occlusion extending from the distal M1 to M2 segment.

血管内手術：搬送時点で発症より4時間経過しておりrt-PA 静注療法は適応外であったため、脳血管内手術による血行再建を計画した。局所麻酔下に右大腿動脈に8Fr シースを留置後全身ヘパリン化を行い、Merci 8Fr

Balloon Guide Catheter (Concentric Medical, Mountain View, CA, USA) を左総頸動脈に留置し造影を行うと左頸部内頸動脈に数珠状の狭窄所見を認め (Fig. 3A, B), Osborn らの分類の type 1 の所見でFMD と診断した。



Fig. 4
The occluded MCA is successfully recanalized (A: A-P view, B: lateral view).

左中大脳動脈は M1 遠位部で閉塞しており (Fig. 3C, D), Merci Microcatheter 18L (Concentric Medical, Mountain View, CA, USA) を ASAHI CHIKAI 0.014" ガイドワイヤー (朝日インテック, 愛知) と共に慎重に左中大脳動脈閉塞部の遠位に誘導し, ガイディングカテーテルからマイクロカテーテルからの同時造影で閉塞部が左 M1 遠位から M2 に及んでおり (Fig. 3E), Merci retriever による血栓回収の際の血管損傷によるくも膜下出血が危惧されたため, 血栓回収は行わずバルーンによる機械的血栓破碎を計画した. ASAHI CHIKAI 0.014" ガイドワイヤーに 165 cm の ASAHI Extension NV ガイドワイヤー (朝日インテック, 愛知) を接続後, 先に留置したマイクロカテーテルに挿入し閉塞部より遠位にガイドワイヤーを留置しマイクロカテーテルを抜去した. 1.5 mm × 10 mm の Unryu PTA dilatation catheter (カネカメディクス, 大阪) を誘導し閉塞部の遠位から近位にかけて 1 気圧 10 秒の緩徐な拡張で 3 気圧 30 秒間を 3 回, 4 気圧 40 秒間を 3 回, 5 気圧 50 秒間を 3 回行い機械的血栓破碎を行った. 最終の血管撮影では TICI grade 2B の再開通を認めた (Fig. 4A, B).

術後経過: 術後 CT で出血性合併症なく, 術後アルガトロバンとエダラボンによる点滴加療とクロピドグレルによる抗血小板療法を行い, 術後 MRI では左島皮質に梗塞巣を認めたが (Fig. 5), 術後 3 日目に意識清明となり, 右片麻痺, 運動性失語, ゲルストマン症候群も消失し軽快退院した. 入院中経胸壁心エコーと経食道心エコーにて循環器系精査を行ったが異常を認めず奇異性脳塞栓を含め心原性脳塞栓症の可能性はなく, 塞栓源として FMD による左頸部内頸動脈数珠状狭窄からの動脈原性塞栓が示唆された.

退院後もクロピドグレル単剤による抗血小板療法を継続し, 現在まで虚血性事象の出現を認めていない.

考 察

FMD に合併した脳血管障害について Mettinger らは 51% に脳動脈瘤を認め, そのうちくも膜下出血発症が 49% と多く, 脳内出血 8%, 虚血性病変は脳梗塞 8%, TIA 11% と報告しており, 虚血性病変の頻度は少ない⁵⁾. また FMD は欧米では数多く報告されているが本邦での報告は少なく⁴⁷⁾, 頸部内頸動脈の FMD に起因した急性

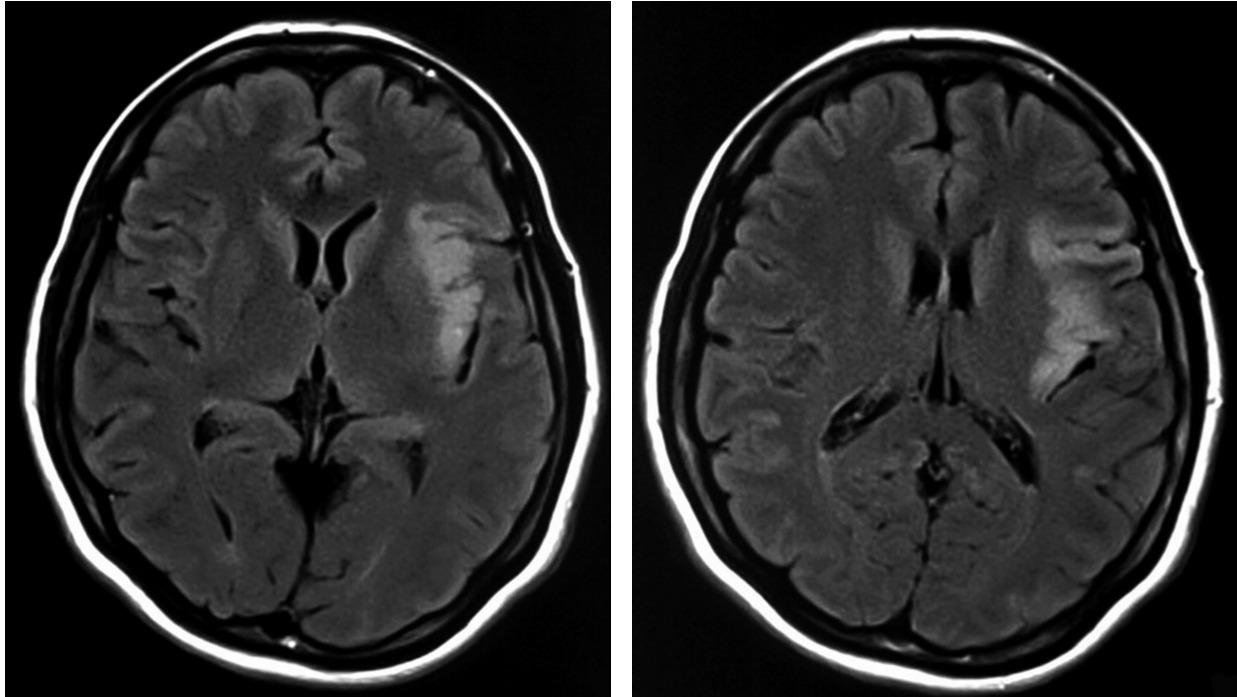


Fig. 5
Postoperative MRI shows infarction in the left insular cortex.

期脳梗塞に対して脳血管内手術が行われた報告は我々が渉猟し得た限りでは3例のみである^{2,11,12)}。

滝上らは minor stroke で発症した左頸部内頸動脈の FMD に対して PTA を施行し良好な結果を得たと報告しており¹²⁾、また須山らも進行性脳梗塞で発症した両側頸部内頸動脈の FMD に対して PTA および stenting を施行し良好な結果を得たと報告している¹¹⁾。

林らは右頸部内頸動脈の FMD に起因した右中大脳動脈急性閉塞に対してウロキナーゼによる血栓溶解療法を行い良好な結果を得ている²⁾。本症例のように中大脳動脈急性閉塞に対してバルーンによる機械的血栓破碎療法を行った報告はこれまでにない。

中大脳動脈急性閉塞に対する脳血管内治療は MELT-Japan に代表されるウロキナーゼの局所動注による線溶療法を始め⁸⁾、PTA バルーンによる機械的血栓破碎療法もその有効性・安全性が報告されている⁶⁾。本邦において2010年より Merci retrieval system が導入されその有効性・安全性が報告され¹⁰⁾、さらに2011年より Penumbra system (Penumbra, Alameda, CA, USA) が導入され使用する治療機材の選択枝が拡がり、今後 rt-PA 静注療法非適応例や無効例の中大脳動脈急性閉塞に対して脳血管内治療がより有効かつ安全な治療とな

り、さらなる治療成績の向上が期待される。

本症例は発症より4時間経過しており rt-PA 静注療法は適応外であったため、脳血管内手術による血行再建を計画した。 Merci retrieval system による血栓回収療法を念頭に置いて治療を開始したが、閉塞部が左 M1 遠位から M2 に及んでおり、 Merci retriever による血栓回収の際の血管損傷によるくも膜下出血が危惧されたため血栓回収療法は行わずバルーンによる機械的血栓破碎療法に変更した。 Merci retrieval system による合併症として中大脳動脈閉塞に対する展開時のくも膜下出血が報告されており¹⁰⁾ 中大脳動脈閉塞への展開には注意を要し、場合によっては治療方法の変更も考慮する必要があると思われる。また本症例のように塞栓源と思われる頸部内頸動脈の FMD を認めた場合、頸部内頸動脈への治療機材の誘導・回収には慎重な操作を必要とし、治療機材もなるべく狭窄部位に負荷のかからない機材を選択すべきであると思われる。

頸部内頸動脈の FMD に起因した急性期脳梗塞に対し、脳血管内手術が行われた症例に対する術後抗血栓療法について確立された報告はないが、本邦におけるこれまでの3例の報告例ではいずれも術後抗血小板療法が行われており^{2,11,12)}、2例はアスピリン単剤、1例はチクロ

ピジン単剤が投与されている。本症例においてもクロピドグレル単剤による抗血小板療法を行い虚血性事象の出現を認めていない。術後抗血栓療法については抗血小板療法あるいは抗凝固療法が必要と思われる²⁾。

結 語

頸部内頸動脈のFMDに起因した左中大脳動脈塞栓症の1例を報告した。rt-PA静注療法適応外で脳血管内手術による血行再建を計画したが、閉塞部が左M1遠位からM2に及んでおりMerci retrieverによる血栓回収療法は行わずバルーンによる機械的血栓破碎療法を行い再開通が得られ、良好な転帰が得られた。本邦において頸部内頸動脈のFMDに起因した中大脳動脈塞栓症の報告はこれまでに1例のみで極めて稀で、バルーンによる機械的血栓破碎療法を行った報告はない。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

文 献

- 1) 福内靖男, 後藤文男: 動脈の fibromuscular dysplasia と脳卒中. 神経内科 19:541-550, 1983.
- 2) 林 純一, Karaginozov KL, 入谷克己, 他: 頸部内頸動脈線維筋性形成異常症に合併した超急性期脳梗塞の一例. 脳外速報 17:965-970, 2007.
- 3) 加川瑞夫: 線維筋性形成異常症. 日本臨床 (別冊) 領域別症候群シリーズ 26 (神経症候群 I): 303-307, 1999.
- 4) 川俣貴一, 竹下幹彦, 加川瑞夫: 線維筋性形成異常症. CT, MRI 時代の脳卒中学, 日本臨牀 (増) 51:636-641, 1993.
- 5) Mettinger KL, Ericson K: Fibromuscular dysplasia and the brain. Observations on angiographic, clinical and genetic characteristics. Stroke 13:46-52, 1982.
- 6) Nakano S, Iseda T, Yoneyama T, et al: Direct percutaneous transluminal angioplasty for acute middle cerebral artery trunk occlusion: an alternative option to intra-arterial thrombolysis. Stroke 33:2872-2876, 2002.
- 7) 西本 詮, 植田清隆, 本間 温: 頸頭動脈系 FMD 症例のまとめ. 厚生省特定疾患ウィリス動脈輪閉塞症の成因・治療及び予防に関する研究班. 昭和 57 年度研究報告. 28-39, 1983.
- 8) Ogawa A, Mori E, Minematu K, et al: Randomized trial of intraarterial infusion of urokinase within 6 hours of middle cerebral artery stroke: the middle cerebral artery embolism local fibrinolytic intervention trial (MELT) Japan. Stroke 38:2633-2639, 2007.
- 9) Osborn AG, Anderson RE: Angiographic spectrum of cervical and intracranial fibromuscular dysplasia. Stroke 8:617-626, 1977.
- 10) 坂井信幸, 植田敏浩, 早川幹人, 他: MERCI リトリバーを用いた急性脳動脈再開通療法 —我が国における初期周術期成績—. JNET 5:23-31, 2011.
- 11) 須山武裕, 永島宗紀, 長谷川洋, 他: 両側の症候性内頸動脈線維筋性形成異常症に対して経皮的血管拡張術を施行した1例. 脳卒中 32:282-289, 2010.
- 12) 滝上真良, 馬場雄大, 齋藤孝次: 頸部内頸動脈の線維筋性形成異常症に対する経皮的血管形成術の1例. No Shinkei Geka 30:301-306, 2002.

JNET 6:40-45, 2012

要 旨

【目的】 頸部内頸動脈の線維筋性形成異常症 (FMD) に起因した左中大脳動脈塞栓症の1例を報告する。**【症例】** 47歳, 女性. 失語症, 右片麻痺を発症し, MRI 拡散強調画像で左前頭葉・島皮質に高信号域を認め, 頸部 MRA で左頸部内頸動脈の壁不整, 頭部 MRA で左中大脳動脈閉塞を認めた. rt-PA 静注療法は適応外で, 脳血管内手術による血行再建を計画し, 左総頸動脈撮影にて FMD と診断した. 閉塞部位が左 M1 遠位から M2 に及んでおり血栓回収療法は行わずバルーンによる機械的血栓破碎療法を行い再開通を認め, 良好な転帰が得られた。**【結論】** 左中大脳動脈急性閉塞は FMD からの動脈原性塞栓が示唆され, バルーンによる機械的血栓破碎療法を行った稀な1例であった。