

## 症例報告

頭蓋内内頸動脈閉塞で発症し内頸動脈海綿静脈洞瘻を伴う特発性内頸動脈解離の一例

山之内 高志<sup>1,2</sup> 松原 功明<sup>3</sup> 金森 史哲<sup>2</sup> 瀨瀬 直樹<sup>2</sup>

<sup>1</sup>刈谷豊田総合病院 脳神経外科,

<sup>2</sup>公立陶生病院 脳神経外科,

<sup>3</sup>大阪医科大学 脳神経外科・脳血管内治療科

Key word: 内頸動脈解離, 急性期脳梗塞, 内頸動脈海綿静脈洞瘻, 血栓回収療法, 脳血管内治療

本論文を、日本脳神経血管内治療学会 機関誌 JNET Journal of

Neuroendovascular Therapy に投稿するにあたり、筆頭著者、共著者によって、国

内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないことを誓約致します。

## 和文要旨：

### 「目的」

内頸動脈(ICA)解離による ICA 閉塞と内頸動脈海綿静脈洞瘻(CCF)を同時に発症した症例に対し血栓回収療法を試みた症例を報告する。

### 「症例」

患者は、意識障害、右片麻痺、失語で発症した左 ICA 閉塞の 43 歳男性。後方視的にみると微細な CCF を伴う ICA 解離による閉塞であったが、解離所見を認識できず急性期血栓回収療法として Penumbra システムにより血栓吸引を行った。ICA の再開通は得られず CCF が悪化した。ICA の再開通はリスクが高いと考え、コイルで ICA の母血管閉塞を行った。CCF は消失したが左中大脳動脈領域の広範囲が梗塞となった。

### 「結論」

解離による閉塞部への血栓吸引療法は解離を悪化させる可能性がある。急性期血栓回収療法の際は再開通を急いでも病態を適切に判断し治療法を選択する必要がある。

## 緒言

脳主幹動脈閉塞 (large vessel occlusion: LVO)による急性期脳梗塞の再開通は時間が遅れるほど、機能予後が悪化する可能性が高くなる<sup>1)</sup>。そのため、LVO は可及的速やかに治療を行う必要がある。しかし、LVO の病態を十分に検討し、その原因に適した治療を選択しなければならない。今回、我々は頭蓋内内頸動脈 (internal carotid artery: ICA) 閉塞で発症し内頸動脈海綿静脈洞瘻 (carotid artery cavernous sinus fistula: CCF)を伴う頸部から頭蓋内に及ぶ特発性内頸動脈解離に対して、血栓回収療法を試みた症例を報告する。

## 症例提示

患者：43 歳男性。

主訴：意識を失い倒れていた。

既往歴：高血圧、高脂血症、白血球増多症を指摘されていたが内服薬はなかった。不整脈の既往はなかった。

生活歴：喫煙 20 本/日、機会飲酒。

現病歴：パチンコ店内で意識を失い倒れているのを発見され、当院へと救急搬送された。

発見から病院到着までの時間は約 25 分であった。

来院時現症：神経学的所見は、意識レベルは傾眠、重度右片麻痺、全失語をみとめた。

National Institute of Health Stroke Scale (NIHSS)は 23 点であった。

画像所見：血液生化学検査に特記所見はみとめず。心電図は洞調律であった。来院 15 分後の頭部 CT (Fig.1A)と来院 30 分後の頭部 MRI 拡散協調像 (Fig1.B,C)では、左中大脳動脈 (middle cerebral artery: MCA)領域に早期虚血性変化をみとめ、ASPECTS は 4 点、ASPECTS DWI は 3 点であった。また、左 MCA に hyper dense MCA sign をみとめ (Fig.1A 矢印)、頭部 MRA では左 ICA から MCA の描出をみとめず、左前大脳動脈 A1 部や左後交通動脈は描出されなかった。(Fig.1D)。

治療方針：患者は衆目下にある店内で倒れており、発症からの時間はそれ程経過していないものと考えられたが、正確な発症時間が不明でありアルテプラゼの静注療法は行わなかった。年齢も若く症状も重いため、患者家族とも相談の上、血栓回収療法を行う方針とした。

脳血管内治療：局所麻酔下に全身ヘパリン化し右大腿動脈よりアプローチした。左総頸動脈撮影にて、頸動脈分岐部に狭窄はみとめず (Fig.2A)、左 ICA の眼動脈分岐部の遠位に閉

塞をみとめた (Fig.2B)。9Fr Optimo (東海メディカル, 春日井, 愛知)を ICA 起始部に留置し、Penumbra 5MAX ACE (Penumbra, Alameda, CA, USA)を Excelsior XT27 (Stryker, Kalamazoo, MI, USA)と CHIKAI 14 (朝日インテック, 瀬戸, 愛知) と同軸にして ICA 閉塞部に誘導した (Fig.3A 円内)。そして 5MAX ACE からポンプによる血栓吸引を行った。吸引時に Optimo から造影剤を弱く注入すると、ICA C4 部の周囲が早期に造影される所見をみとめた (Fig.3B)ため、吸引を中止し Optimo から造影すると、左 ICA の再開通は得られていないことともに、左 CCF の所見が明らかとなった (Fig.3C)。患者の症状を確認したところ、左動眼神経麻痺・左眼球突出・左眼球結膜充血が出現していた。5MAX ACE を抜去する際に CCF をさらに悪化させる危険性や出血性合併症を引き起こす危険性もあると考え、5MAX ACE は抜去せずに残して、Optimo のバルーンで ICA の遮断を行った。この時点で血管撮影画像を見直すと、総頸動脈撮影の時点で ICA 起始部から眼動脈遠位の閉塞部近くまで、解離を示唆する筋状の無造影の所見があり (Fig.2A,B)、わずかであるが CCF をみとめており (Fig.2B 円内)、ICA 解離による ICA 閉塞であったと考えた。左大腿動脈にシースを挿入し、新たに対側からカテーテルを誘導した。まず、対側の総頸動脈撮影と椎骨動脈撮影を行い、遠位 ICA 解離部からの extravasation や CCF への血流が無いことを確認した。また、前交通動脈や後交通動脈を介する左 MCA への血流はみとめられなかった。

Optimo と平行して 6Fr ガイディングカテーテルを左 ICA に留置し、マイクロカテーテルとマイクロバルーンカテーテルを 5 MAX ACE の先端部まで誘導した。ACE を抜去すると CCF の所見が悪化しており (Fig.3D)、同時に眼球症状も悪化していた。マイクロカテーテル造影を行うと ICA 末梢の不整な狭窄の先に前大脳動脈と MCA の起始部がかすかに造影された (Fig.3E)。

ICA の再開通は出血性合併症や CCF の増悪等などのリスクが高いと判断し、さらに CCF の所見が強いため ICA の母血管閉塞を行った (Fig.4A)。

術後経過：血管内治療後の頭部 CT では頭蓋内出血はみとめず、左 MCA 領域に広範囲の低吸収域への変化をみとめた (Fig.4B)。神経症状の改善なく梗塞巣の浮腫が進行し意識障害の悪化をみとめたため、同日に外減圧術を行った。翌日の頭部 CT では、左中大脳動脈領域の梗塞が顕在化し浮腫も強くなっていた。発症 29 日目に施行した脳血管撮影では、左頸部 ICA に壁不整な解離所見は残っていたが、コイルで塞栓した頭蓋内 ICA の再開通はみとめなかった (Fig.4C)。右片麻痺、失語、左動眼神経麻痺が残存した。骨形成術を行い、回復期リハビリテーション病院へと転院した。発症 2 ヶ月後の modified Rankin Scale は 4 であった。

## 考察

欧米では動脈解離による脳梗塞は全年齢において 2%程度であるが、若年者においては脳梗塞の主要な原因となっており、若年者の脳梗塞の 10–25%の割合を占めている<sup>2)</sup>。欧米では頸部頸動脈の解離が多いが、日本を含めたアジアでは頭蓋内動脈の解離が多い<sup>3)</sup>。本邦の非外傷性頭蓋内解離性動脈病変の全国調査によると、頭蓋内解離性病変の中で ICA 解離は 3%と少なく<sup>4)</sup>、頭蓋内 ICA 解離は稀な病変である。本症例は、頸部内頸動脈起始部から頭蓋内にまで解離が及び頭蓋内で閉塞し CCF を合併したと考えられ、非常に稀な症例である。

本症例の病態の機序を後方視的に検討する。まず、動脈解離による脳虚血の発症機序としては、塞栓性機序と狭窄あるいは閉塞に伴う血行力学的な機序があり、一般的には塞栓性機序による脳虚血が重要である<sup>5)</sup>。しかし、本症例では頸部 ICA から解離が始まってい

るものの、頸部 ICA に狭窄はなく頸部からの血栓塞栓症は考えにくい。頸部 ICA から始まる筋状の解離所見が頭蓋内の閉塞部にまで及んでいるため、頭蓋内に進展した解離により ICA が閉塞し、かつ CCF を合併したものと考えられた。ICA 解離に伴う CCF の報告はあるが<sup>6)</sup>、ICA 解離による閉塞と CCF が合併している症例はみとめられなかった。本症例の 5MAX ACE による吸引前の CCF は早期に静脈が造影されてはいるものの、少量で無症候であったため、Penumbra による吸引療法を行わなければ CCF は悪化せずに問題とならなかった可能性がある。

LVO は早急な再開通が必要であり詳細な原因検索を行う時間を割きにくい一方で、治療前または治療手技中にその原因を推定し、病態に応じて血管内治療の手技を選択する必要がある。本症例では、治療時の総頸動脈撮影において ICA 起始部から眼動脈遠位の閉塞部近くまで筋状の無造影所見とわずかな CCF をみとめていた。早急な最開通を行わなければならない血栓回収手技中の微細な画像所見を瞬時に判断することは難しいが、本症例は若年の LVO でありその原因として動脈解離の可能性を念頭に置き画像のサインに気付くべきであった。本症例における術前の画像検査では頸部 MRA は撮影しておらず、頭部 MRA では、元画像をみても double lumen sign などの解離を疑う所見はみとめられず、治療手技前に解離と診断し得る画像所見は得られなかった。頸部 MRA や頸動脈エコーを行えば、解離を疑い得る所見を捉えられた可能性がある。また動脈解離を疑う場合、回転撮影や再構成画像で解離腔が認識できる可能性がある。

本症例は、解離部に 5MAX ACE による血栓吸引を行ったことにより解離が悪化したと考えられる。CCF の悪化により、動眼神経麻痺・眼球突出・眼球結膜充血の症状が出現して症候性の CCF となった。解離を悪化させた 5MAX ACE を抜去する事により CCF のさらなる悪化や、解離腔の末梢への伸展の程度によっては出血性合併症を来す可能性も考えら

れた。ゆえに緊急時に止血が出来るようデバイスの準備を整えた上で 5MAX ACE を抜去する事とし、そのために時間を要した。また ICA の遠位部からのマイクロカテーテル造影では ICA 末梢にも pearl and string sign 様の解離を疑う所見があり(Fig.3E)、末梢までの再開通は容易ではないと思われた。来院時の DWI 所見で淡い広範囲の虚血性変化を認め、さらに 2 時間程経過し梗塞は進行していると考えられた。以上より ICA の再開通は利益よりもリスクが高いと判断した。さらに強い CCF の所見があり、かつ遅発性に再開通した場合の出血性合併症が生じるリスクも考慮し、ICA の母血管閉塞を行った。もしも脳梗塞が進行していない状態であったならば、ICA の再開通をステント留置にて行い、CCF に対しては経動脈的かまたは経静脈的な塞栓術が考慮される。動脈解離による LVO であると判断できた時の治療方針について検討する。前方循環の動脈解離による脳虚血に対する血管内治療の報告は、頸部内頸動脈解離からの塞栓性機序のものが多く<sup>7,8)</sup>、Jan らの review では塞栓性機序の頭蓋内動脈閉塞に対して当時行われた通常のリハビリ療法を行い良い結果が認められている<sup>2)</sup>。頭蓋内 ICA 解離による頭蓋内動脈閉塞に関しての症例報告は少ないがある。Fujimoto らは、解離による頭蓋内 ICA 狭窄と狭窄からの塞栓症にて MCA が閉塞した症例で末梢の血栓を吸引にて摘出し良い結果を得ている<sup>9)</sup>。ただし、彼らの症例では、解離自体の狭窄は強くなく、解離部の治療は不要と判断し、M2 の血栓を通常のペナンプラ吸引システムにより吸引しており、解離部には手を加えていない。本症例では解離による閉塞に対して解離部に Penumbra 5MAX ACE で吸引を行い CCF の悪化を招いた。解離部での血栓吸引が血管壁に対する悪影響を及ぼし、解離を悪化させその結果 CCF を悪化させたと推測される。そのため解離自体による閉塞部への血栓吸引による再開通手技は勧められない。頭蓋内動脈の解離性閉塞部に対する血管内治療としては、頭蓋内解離病変に対して頭蓋内用自己拡張型ステントや冠動脈用のバルーン拡張型ステントを使

用した報告があり<sup>10,11,12)</sup>、ステント留置が望ましいと考えられる。ただし、急性期脳梗塞に対しての頭蓋内ステントの留置は確立された治療法ではなく今後の検討課題である。Padalinoらは頸部ICA解離によるICAとMCAのタンデム閉塞の症例に前交通動脈を介して対側から誘導したマイクロカテーテルよりabciximabを動注しMCA閉塞を解除後、ICAの再開通を行って良好な成績を得たと報告している<sup>13)</sup>。ICA解離部の再開通が不可能である場合、この手技を応用すれば、前交通動脈を介して患側MCAを再開通させる事が可能であり選択肢の一つであろう。

## 結語

頭蓋内ICA閉塞で発症しCCFを合併した頸部から頭蓋内に及ぶICA解離の症例を経験した。解離性病変との認識がない状況で血栓吸引を行ったがICAの再開通は得られずCCFを悪化させた。急性期血栓回収療法の際には再開通を急いでも、解離の所見などを見落とさずに適切に対応する必要がある。

## 利益相反

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない

## References

1) Nils H, Osama O, Michael T, et al: Systematic evaluation of patients treated with neurothrombectomy devices for acute ischemic stroke: Primary results of the STRATIS Registry. Stroke 2017; 48: 2760-2768.

- 2) Hoving JW, Marquering HA, Majoie CBLM: Endovascular treatment in patients with carotid artery dissection and intracranial occlusion: a systematic review. *Neuroradiology* 2017; 59: 641-647.
- 3) Debette S, Compter A, Labeyrie MA, et al: Epidemiology, pathophysiology, diagnosis, and management of intracranial artery dissection. *Lancet Neurol* 2015; 14: 640-654.
- 4) 山浦 晶, 吉本 高志, 橋本 信夫, 他: 非外傷性頭蓋内解離病変の全国調査 (第一報) *脳卒中の外科* 1998; 26: 79-86.
- 5) Lucas C, Moulin T, Deplanque D, et al: Stroke patterns of internal carotid artery dissection in 40 patients. *Stroke* 1998; 29: 2646-2648.
- 6) Linfante I, Lin E, Knott E, et al: Endovascular repair of direct carotid-cavernous fistula in Ehlers-Danlos type IV. *J Neurointerv Surg* 2015; 7: e3.
- 7) Fields JD, Lutsep HL, Rymer MR et al. Endovascular mechanical thrombectomy for the treatment of acute ischemic stroke due to arterial dissection. *Interv Neuroradiol* 18: 74–79, 2012.
- 8) Jensen J, Salottolo K, Frei D, et al. Comprehensive analysis of intra-arterial treatment for acute ischemic stroke due to cervical artery dissection. *J Neurointerv Surg* 9: 654-658, 2017.

9) Fujimoto M, Tateshima S, Ali L, et al: Direct thrombus aspiration using the Penumbra system for the treatment of pediatric intracranial dissection.

*NeuroIntervent Surg* 2013; 5: e43.

10) Jeon P, Kim BM, Kim DI, et al: Emergent self-expanding stent placement for acute intracranial or extracranial internal carotid artery dissection with significant hemodynamic insufficiency. *Am J Neuroradiol* 2010; 31: 1529-1532.

11) Ohta H, Natarajan SK, Hauck EF, et al: Endovascular stent therapy for extracranial and intracranial carotid artery dissection: single-center experience. *J Neurosurg* 2011; 115: 91-100.

12) Kurre W, Bansemir K, Aguilar Pérez M, et al: Endovascular treatment of acute internal carotid artery dissections: technical considerations, clinical and angiographic outcome. *Neuroradiology* 2016; 58: 1167-1179.

13) Padalino DJ, Deshaies EM: Tandem middle cerebral artery-internal carotid artery occlusions: reduced occlusion-to-revascularization time using trans-anterior communicating artery approach with a Penumbra device. *J Neurosurg* 2012; 116: 665-671.

## Figure legends

### Figure 1

A: 発症時の頭部 CT にて hyper dense MCA sign (矢印) と左側頭葉に早期虚血性変化をみとめた。

B, C: 発症時の頭部 MRI DWI にて島皮質に高信号域をみとめた。左 MCA 領域の皮質には淡く虚血性変化をみとめた。

D: 発症時の頭部 MRA で左 ICA 閉塞をみとめた。左前大脳動脈基始部および後交通動脈はみとめなかった。

### Figure 2

#### 左内頸動脈撮影側面像

A: 動脈相早期、ICA の造影遅延をみとめるが頸部 ICA に狭窄や閉塞所見はみとめなかった。ICA 分岐部に筋状の無造影所見をみとめた (矢印)

B: 動脈相、ICA の眼動脈以降の描出をみとめなかった。少量の CCF をみとめた (円内)。ICA 分岐部から眼動脈まで筋状の無造影所見をみとめた (矢印)

### Figure 3

A: Penumbra 5MAX ACE を閉塞部に誘導後の左内頸動脈造影 (側面像) にて Penumbra 5MAX ACE の先端を示す (円内)。

B: 吸引時の造影 (側面像) にてわずかな海綿静脈洞瘻を認める

C: ACE からの吸引後の左内頸動脈造影では、左 ICA の再開通は得られず、海綿静脈洞瘻が明らかとなった (側面像)。

D: Penumbra 5MAX ACE 抜去後の左内頸動脈造影で、海綿静脈洞瘻の著明な悪化をみとめた(側面像)

E: Penumbra 5MAX ACE 抜去後にマイクロカテーテルから造影すると、ICA 先端に高度の狭窄所見をみとめた。左前大脳動脈(矢印)と中大脳動脈(矢頭)の一部が造影されている(正面像)。

#### Figure 4

A: 内頸動脈をコイルにて閉塞した。単純 X 線画像側面像

B: 治療直後の頭部単純 CT では、くも膜下出血はなく、左中大脳動脈領域の虚血性変化が進行している。

C: 発症 29 日後の左総頸動脈撮影で、ICA 起始部が不整に造影される所見をみとめた。

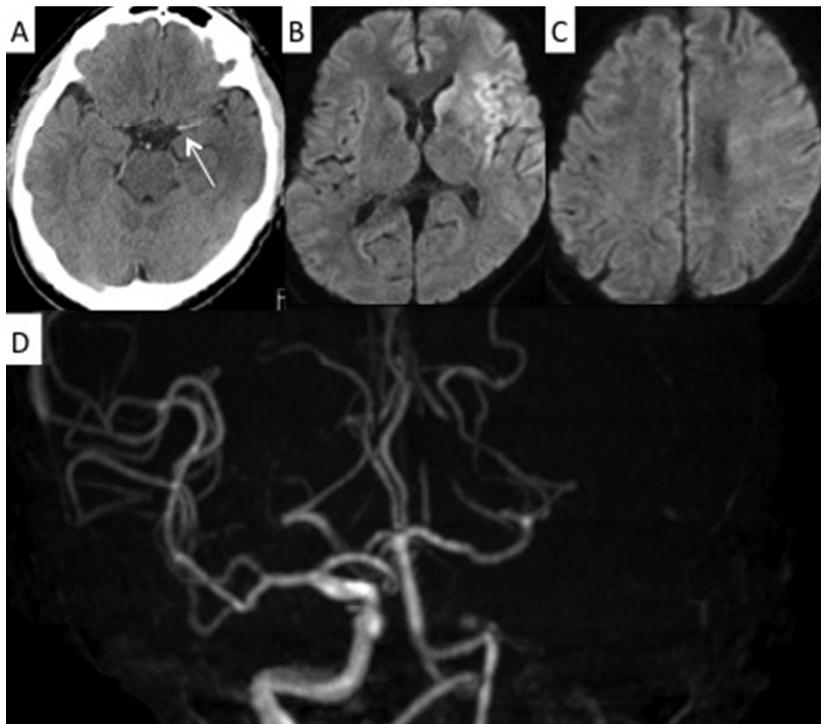


Fig.1

144x127mm (72 x 72 DPI)

Review

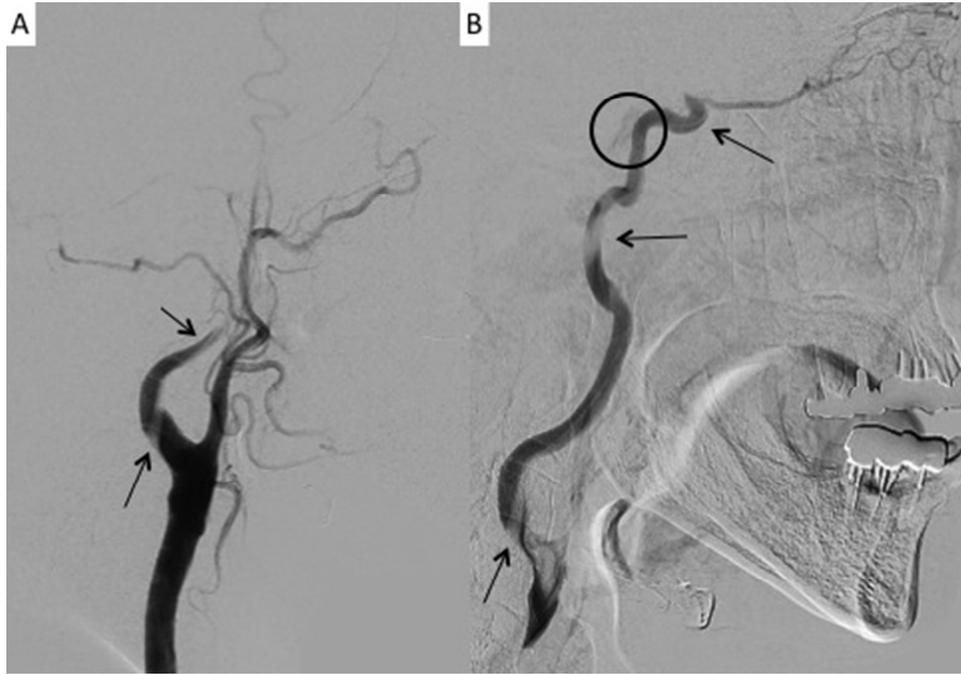


Fig.2

170x118mm (72 x 72 DPI)

review

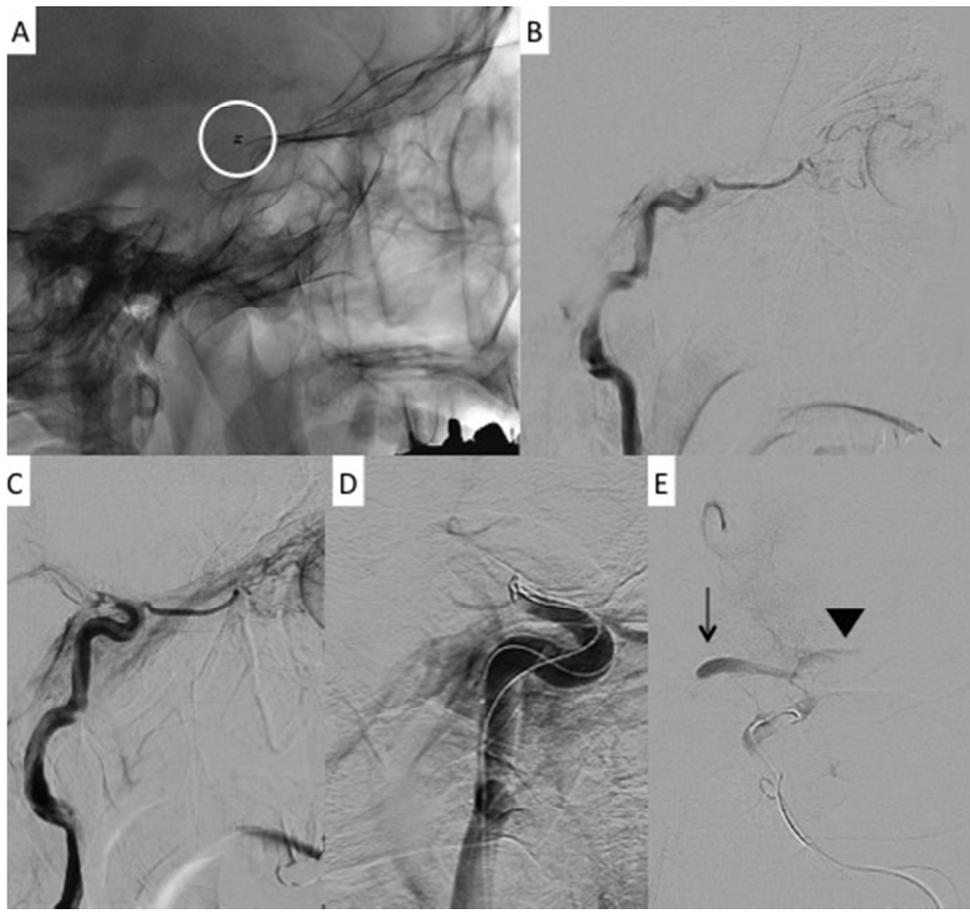


Figure3

171x159mm (72 x 72 DPI)



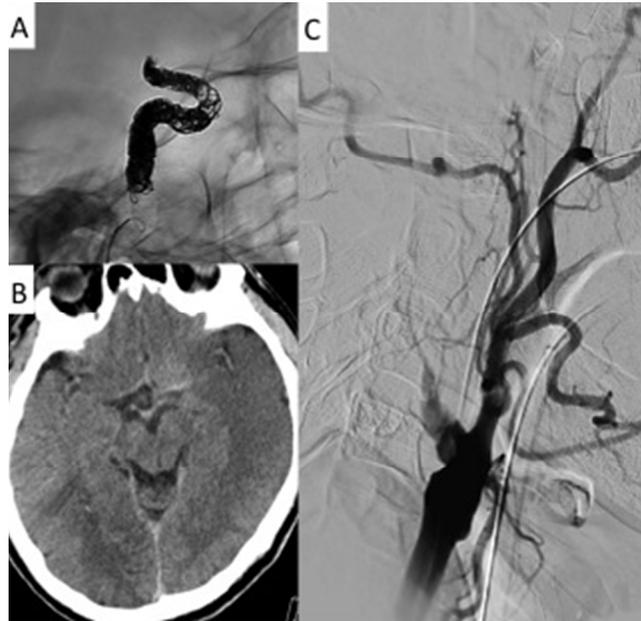


Figure4

113x109mm (72 x 72 DPI)

Review