

症例報告

急性脳梗塞に対する血栓回収療法中に Carotid Cavernous Fistula をきたした一例

辻敬一¹⁾、辻篤司¹⁾、吉村弥生¹⁾、小川暢弘²⁾、中澤拓也¹⁾、野崎和彦¹⁾

1) 滋賀医科大学脳神経外科

2) 滋賀医科大学脳神経内科

連絡著者辻 敬一

滋賀医科大学

〒520-2192滋賀県大津市瀬田月輪町 077-548-2257

E-mail : tsujikei@belle.shiga-med.ac.jp

キーワード : acute cerebral infarction, thrombectomy, vessel perforation, Carotid Cavernous Fistula

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】急性脳梗塞に対する血栓回収療中に閉塞部での血管穿孔による Carotid Cavernous Fistula (CCF) をきたした一例を経験した。

【症例】88歳女性。左内頸動脈海綿静脈洞部閉塞による急性脳梗塞に対し血栓回収療法を行った。マイクロガイドワイヤーを遠位に誘導する際に内頸動脈C4部内側で抵抗があり、血栓回収ステントを展開・回収後に CCF をきたした。閉塞部に動脈硬化性狭窄があり、狭窄部で内頸動脈に穿孔を来たしたと思われる。

【結論】動脈硬化性狭窄を有する頭蓋内主幹動脈閉塞の血栓回収療法では血管の穿孔に注意を要する。

緒言

急性脳梗塞に対する血栓回収療法で血管穿孔は0.6-4.9%に生じるとされ¹⁾²⁾³⁾⁴⁾⁵⁾，その神経学的予後は不良である⁶⁾。今回我々は左内頸動脈海綿静脈洞部の閉塞による急性脳梗塞に対する血栓回収療法中に，同部に穿孔を生じ，Carotid Cavernous Fistula (CCF) を来たした一例を報告する。

症例

症例：88歳 女性

既往歴：高血圧 高脂血症 大腿骨骨折

現病歴：大動脈解離（Stanford A型）を発症し当院へ救急搬入され，心臓血管外科で上行大動脈置換術を施行後入院中であった。第11日より発作性心房細動が確認され，ヘパリンでの抗凝固療法が開始

された。第12病日8時に運動性失語，右片麻痺が出現し，状態改善がなく頭部CTで頭蓋内出血・早期虚血巣を認めず，同日17時頃当科にコンサルトされた。National institute of Health Stroke Score（以下

NIHSS）：16点であり，院内脳卒中プロトコールに従い，18時に頭部MRIを施行すると両側大脳半球・小脳に拡散強調画像で多発性の高信号域，MRAで左内頸動脈の閉塞を認め（Fig.1），心原性塞栓症が疑われた。DWI clinical mismatchあり再開通療法の適応があると判断した。

脳血管内治療：19時45分に左大腿動脈穿刺で脳血管撮影を開始した。左内頸動脈海綿静脈洞部（C3）での閉塞，左眼動脈を介する遠位内頸動脈への灌流，右側より前交通動脈を介する側副血行路を確認し血栓回収療法を行うこととした（Fig.2A-B）。9Fr シース 25cm（テルモ，東京）を留置し，Optimo 9Fr 90cm（東海メディカルプロダクツ，愛知）をCXカテーテル6Fr JB2 125cm（カテックス，神奈川）を同軸としガイドワイヤーをサーフ 0.035inch 150cm（パイオラックス，神奈川）として左内頸動脈へ留置を試みたが，動脈硬化のため誘導困難で左総頸動脈に留置した。Penumbra 5MAX ACE68（メディコスヒラタ，大阪，以下ACE68）をMarksman 150cm（Medtronic，Minneapolis，USA）とCHIKAI black14 200cm（朝日インテック，東京）を用いて内頸動脈遠位への誘導を試みた。Optimo 9Frから造影すると，C4-C3部での閉塞が確認された（Fig.2C-D）。CHIKAI black 14はC4部内側で抵抗があり遠位への誘導が困難であった。Marksmanは内頸動脈C4部まで、ACE68もC4/C5移行部から遠位へ誘導できなくなった。Marksmanから撮影を行い，Marksmanが内頸動脈の血栓内にあると考えて手技を継続し

た (Fig.2E) . ACE68 を持続吸引し ADPAT (a direct aspiration first pass technique) で血栓を吸引し , ACE68 内には血栓が確認できたが , 内頸動脈の再開通は得られなかった . 同様のシステムで Marksman を内頸動脈C4部まで誘導し , マイクロガイドワイヤーを Traxcess 14 200cm (テルモ , 東京) に変更したが , 1 pass 時と同様に Traxcess 14 が C4 部内側で抵抗があり遠位への誘導は困難であった . Traxcess 14 を左中大脳動脈 M1 までなんとか誘導できたように見えたが (Fig.2F-G) , Marksman は C3 部より遠位には誘導できなかった . マイクロカテーテルからの造影は行わずに同部から Solitaire 6mm/40mm (Medtronic , Minneapolis , USA) を展開した . ステンットの 3rd marker から遠位は展開が不十分で , 3rd marker から近位側では内頸動脈のサイズでステントが展開された (Fig.3A-B) . Marksman を抜去し , ACE68 で持続吸引を行いながら , Solitaire をアンカーとして ACE68 を C3 部まで引き上げステントを回収した . 血栓は回収されたものの , 血管撮影を行うと再開通は得られておらず CCF が確認された (Fig.3C-D) . 9Fr Optimo のバルーンを拡張して総頸動脈を閉塞し , ヘパリンのリバー스는行わず 10 分間待機したところ , 内頸動脈C4部で再開塞しており CCF は消失した (Fig.3E) . 前交通動脈を介する側副血行が良好であり (Fig.3F) , 内頸動脈は閉塞させたまま手技を終了することとし , Angioseal Plus 8Fr (テルモ , 東京) で止血し手術を終了した .

術後経過 : 手術翌日の頭部 MRI では左前脈絡叢動脈の灌流域 , 深部白質に梗塞巣の増悪を認めた . CCF の再発は認めず , 左内頸動脈は C1 まで閉塞の進展を認めた (Fig.4) . 失語 , 右片麻痺は若干増悪し (NIHSS : 17 点) , 最終的に modified Rankin Scale : 4 の状態で療養型

病院へ転院した。

考察

急性期脳梗塞に対する血栓回収療法中に生じる血管穿孔は0.6-4.9%に見られると報告され¹⁾²⁾³⁾⁴⁾⁵⁾，末梢部における塞栓症や血栓が硬い場合に生じやすいとされており，穿孔を起こした場合，その神経学的予後は不良であることが多い⁶⁾。

本例では，術前の頭部MRIで閉塞部位に一致した石灰化を認め，元々動脈硬化性狭窄を有する部位に心原性塞栓が合併したものである。マイクロガイドワイヤーで閉塞部の lesion cross を試みた際に，マイクロガイドワイヤーが内頸動脈C4部の内側を穿孔し海綿静脈洞内に誘導され，内頸動脈C3部まで誘導できたと思われたマイクロカテーテルも実際は海綿静脈洞内へ誘導されていたと思われる。2 pass 時にマイクロガイドワイヤーは左中大脳動脈 M1 まで誘導されたように見えたが，この時もマイクロガイドワイヤーは穿孔部から海綿静脈洞内へ誘導されたと思われる。CCFは術中の初期の段階で形成されていたと思われるが，内頸動脈の閉塞のため描出されず，ステントが誘導・展開されたことで穿孔部が拡大され CCF が明瞭化したと考えられる。今回の症例と同様に，血栓回収療法中に CCF を来たした例は過去に4例報告されている⁷⁾⁸⁾。Matsumoto らの報告では，中大脳動脈（M1）近位部の閉塞に対して，ステントを展開し，引き抜く際に元々蛇行していた内頸動脈が引き伸ばされ meningohipophyseal trunk が損傷し CCF を来たしたと考察されている⁷⁾。本症例では，閉塞部位に元々動脈硬化性狭窄があったと考えられ，マイクロガイド

ワイヤーを狭窄部から遠位側の内頸動脈真腔へ誘導することが困難で、穿孔を来たしたと考えられる。マイクロガイドワイヤーで穿孔を来たし、マイクロカテーテルからの撮影で海綿静脈洞が撮影された時点で穿孔に気づくべきであった。

本症のように、動脈硬化性狭窄が元々ある閉塞例では、血栓回収療法の再開通率が低下する⁹⁾、ステント留置やballoon angioplastyなどのrescue treatmentを必要とする可能性が高い¹⁰⁾とされている。その一方で、内頸動脈海綿静脈洞部でのステント展開、balloon angioplasty、カテーテルの通過回数が多い程血管壁を損傷し、CCFのリスクになり得る⁸⁾とされており、本例のような動脈硬化性狭窄を有する内頸動脈海綿静脈洞部での急性閉塞例に対する血栓回収療法は慎重な姿勢が求められる。

急性脳梗塞に対する再開通療法は、治療開始が迅速であれば転帰を改善させる効果が高く¹¹⁾、当院では速やかに治療を開始するため脳卒中症例に対する画像診断は頭部MRIを優先させている。MRIでは動脈周囲の石灰化は低信号を示すため¹²⁾、MRA TOFで閉塞血管の周囲に動脈硬化性変化を示唆する低信号域の合併がないか事前に確認が必要である。単純CTでは血管周囲の高度石灰化は動脈硬化性変化・狭窄を示唆する所見であり¹³⁾、急性脳梗塞の画像診断に

CT・CT angiographyを用いる場合でも血管周囲に高度石灰化の所見の有無を確認する必要がある。本例ではガイドワイヤーの形状は”J shape”に形成したが、血管撮影上視認ができない穿通枝や閉塞血管へ安全にマイクロガイドワイヤーを誘導する手法として、マイクロガイドワイヤーをPigtail状に形成する手法が有用であると報告さ

れている¹⁴⁾。この方法で、術中のマイクロガイドワイヤーの形状変化により血栓の硬さが判断でき、血栓回収療法の手法に反映できるとの報告もある¹⁵⁾。

今回のような急性期脳梗塞において血管内治療中にひとたびCCFを生じると、t-PAを併用していることが多く、術中へパリン化もされており止血困難となることが予想される。本例ではガイディング・カテーテルのバルーンを拡張するだけで止血が得られたが、今回のような出血性合併症を来した際はまず降圧療法、プロタミンによるヘパリンのリバースを考慮する必要がある¹⁶⁾。バルーンカテーテルで止血を試みる¹⁷⁾、母血管をコイルで閉塞する¹⁸⁾、fistulaを経静脈的にコイルで閉塞させる手法も報告されており⁷⁾、出血を来した要因に合わせ、適切な止血処置を考慮する必要がある。

結語

急性脳梗塞に対する血栓回収療法中に、血管穿孔を生じCCFを来した一例を経験した。動脈硬化性狭窄を有する頭蓋内主幹動脈閉塞では狭窄部位でのマイクロガイドワイヤーによる血管穿孔に注意する必要がある。

利益相反開示

本論文に関して筆頭著者および共著者全員が開示すべき利益相反はない。

文献

- 1) Goyal M, Demchuk AM, Menon BK. et al. Randomized assessment of rapid endovascular treatment of ischemic stroke. *N Engl J Med.* 2015;12:1019-1030.
- 2) Berkhemer OA, Fransen PS, Beumer D et al. A randomized trial of intraarterial treatment for acute ischemic stroke. *N Engl J Med.* 2015;372:11-20.
- 3) Campbell BC, Mitchell PJ, Kleinig TJ et al. Endovascular therapy for ischemic stroke with perfusion-imaging selection. *N Engl J Med.* 2015;372:1009-1018.
- 4) Jovin TG, Chamorro A, Cobo E et al. Thrombectomy within 8 hours after symptom onset in ischemic stroke. *N Engl J Med.* 2015;372:2296-2306.
- 5) Saver JL, Goyal M, Bonafe A et al. Stent-retriever thrombectomy after intravenous t-PA vs. t-PA alone in stroke. *N Engl J Med.* 2015;372:2285-2295.
- 6) 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;9:922-928.
- 7) Matsumoto H, Nishiyama H, Takemoto H, et al. Carotid-cavernous fistula caused by vessel injury while withdrawing a stent retriever during mechanical thrombectomy for acute ischemic stroke: A case report. *J Neuroendovasc Ther.* 2018;12:235-240.
- 8) Alan N, Nwachuku E, Jovin TJ et al. Management of iatrogenic direct carotid cavernous fistula occurring during endovascular treatment of stroke. *World Neurosurg.* 2017;100:e15-20.

- 9) Leischner H, Flottmann F, Hanning U et al. Reasons for failed endovascular recanalization attempts in stroke patients. *J Neurointerv Surg.* 2019 ;11:439-442.
- 10) Jia B, Feng L, Liebeskind DS et al. Mechanical thrombectomy and rescue therapy for intracranial large artery occlusion with underlying atherosclerosis. *J Neurointerv Surg.* 2018;10:746-750.
- 11) Saver JL, Goyal M, van der Lugt A et al. Time to treatment with endovascular thrombectomy and outcomes from ischemic stroke: a meta-analysis. *JAMA.* 2016;316:1279-1288.
- 12) Wildy KS, Yuan C, Tsuruda JS et al. Atherosclerosis of the carotid artery: evaluation by magnetic resonance angiography. *J Magn Reson Imaging.* 1996;6:726-32.
- 13) Taoka T, Iwasaki S, Nakagawa H et al. Evaluation of arteriosclerotic changes in the intracranial carotid artery using the calcium score obtained on plain cranial computed tomography scan: Correlation with angiographic changes and clinical outcome. *J Comput Assist Tomogr.* 2006;30:624-628.
- 14) Sato M, Ohshima T, Ishikawa K, et al. A novel technique of safe and versatile microguidewire shaping with neuroendovascular therapy: modified pigtail method. *J Neuroendovasc Ther.* 2017;11:266-271.
- 15) Ohshima T, Imai T, Sato M, et al. A novel technique for higher success rates of recanalization with stent clot retriever: corkscrew penetrating method. *J Neuroendovasc Ther.* 2017;11:94-98.
- 16) Leishangthem L, Satti SR. Vessel perforation during withdrawal of Trevo

ProVue stent retriever during mechanical thrombectomy for acute ischemic stroke. *J Neurosurg.* 2014;121:995-998.

- 17) Layton KF, Cloft HJ, Kallmes DF. Cerebral Aneurysm Perforations during Treatment with Detachable Coils. Use of Remodelling Balloon Inflation to Achieve Hemostasis. *Interv Neuroradiol.* 2006;12:31-35.
- 18) Nakamura A, Kawashima A, Hayashi M, et al. Internal carotid artery injury due to aspiration technique from balloon guide catheter on acute thrombectomy: A case report. *J Neuroendovasc Ther.* 2019;13:354-357.

Legends of the figures

Fig.1 Diffusion-weighted imaging at the onset showed high-intensity area in the left superior cerebellar peduncle (A) , right corona radiata (B) , and left frontal lobe (C, D). MRA-TOF showed significantly low intensity area around left internal carotid artery (E, arrow). MRA showed occlusion of left internal carotid artery (F).

Fig.2. Angiography before mechanical thrombectomy showed occlusion of left C4 occlusion of internal carotid artery (A, B, C, D). Angiography from microcatheter revealed cavernous sinus around internal carotid artery (E). The microguidewire appeared to be guided from internal carotid artery to middle cerebral artery, but it seems that it was actually guided to cavernous sinus (F, G).

Fig.3 The stent was not fully deployed from 3rd marker to distal end (A;frontal view, B;lateral view). Angiography after retrieving the stent showed Carotid

Cavernous Fistula (C;frontal view, D;lateral view). Right common carotid angiography showed collateral blood flow via anterior communicating artery (E). Left common carotid angiography after temporary occlusion of left common carotid artery showed disappearance of CCF (F).

Fig. 4. DWI the day after treatment showed high-intensity lesion at the territory of anterior choroidal artery (A), left corona radiata (B), and the watershed area of anterior cerebral artery and middle cerebral artery (C, D). MRA showed no recurrence of CCF and occlusion of left internal carotid artery (E).

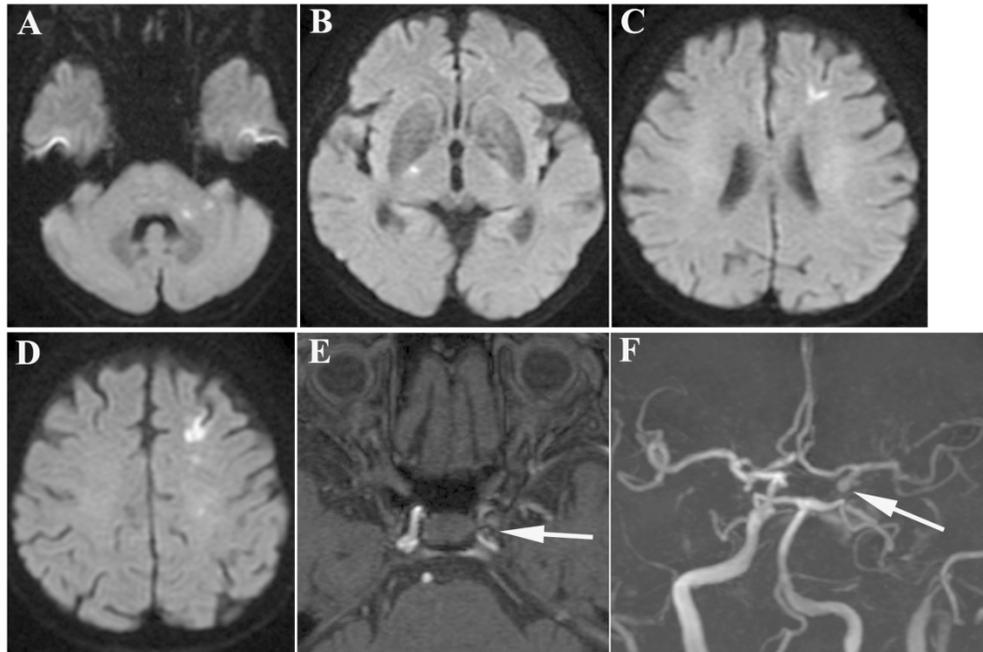


Fig.1

Figure1

177x127mm (300 x 300 DPI)

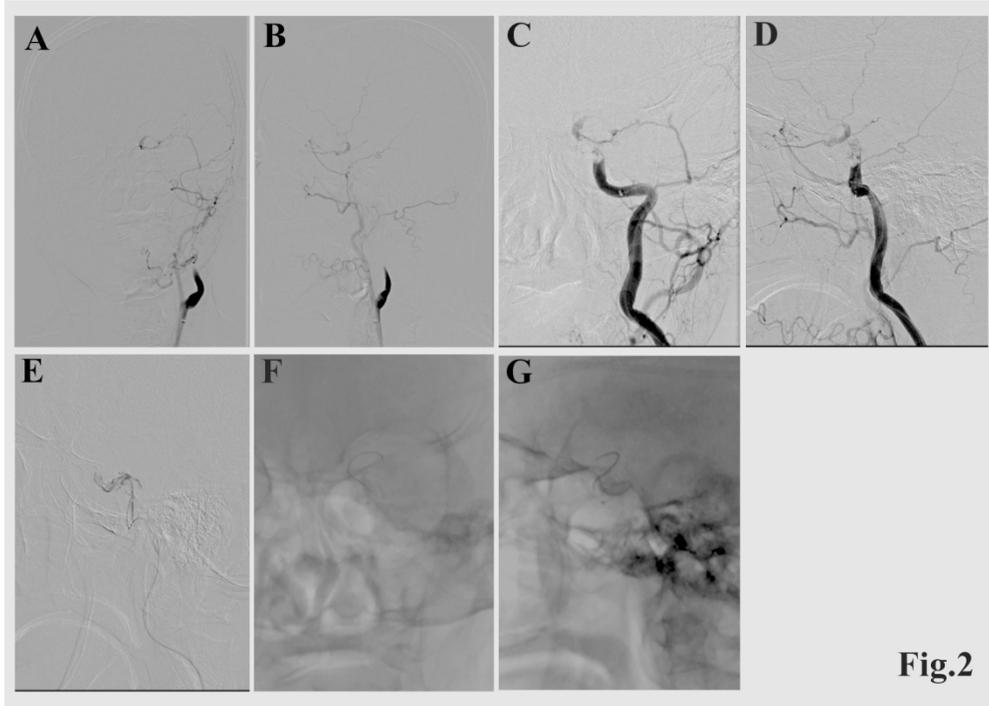


Figure2

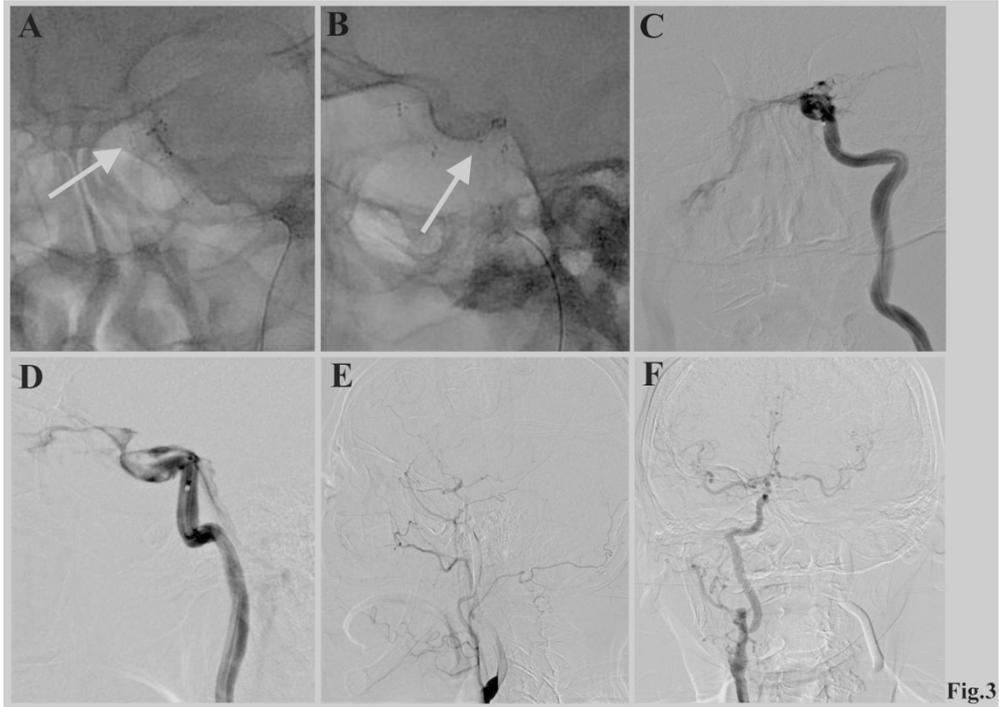


Fig.3

Figure3

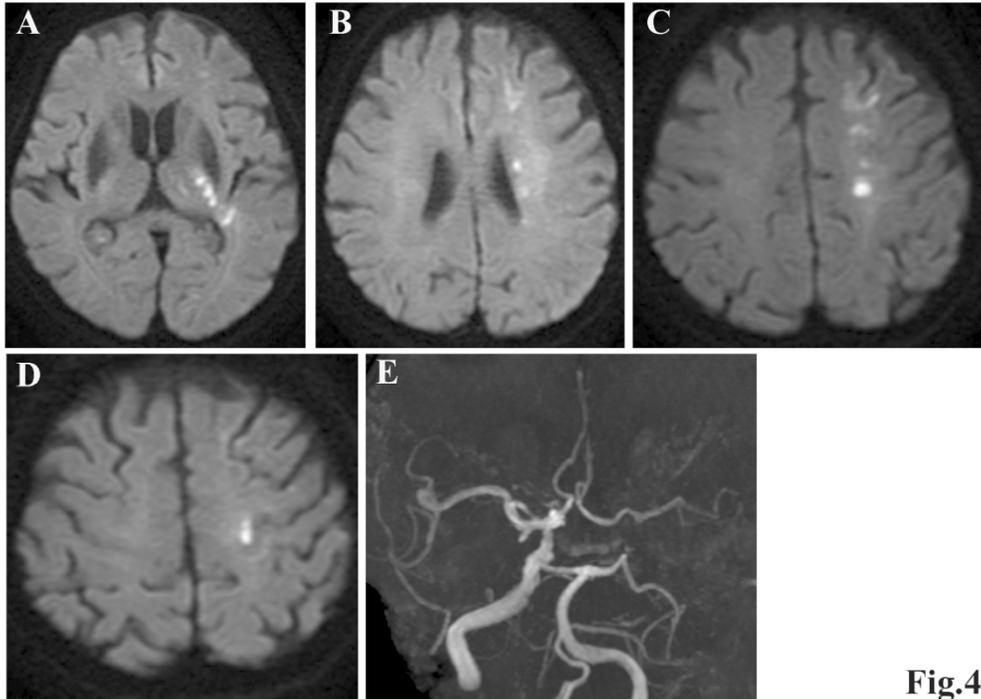


Fig.4

Figure4