

1) 論文種別

症例報告

2) 論文タイトル

Twig-like MCA に合併した内頸動脈終末部閉塞に対して経皮的血栓回収術を行った症例

3) 全員の著者名

酒井優、吉河学史、佐藤克哉

4) 公立昭和病院脳神経外科

5) 連絡著者：酒井優（公立昭和病院脳神経外科 〒187-8510 東京都小平市花小金井 8-1-1、042-461-0052、sakaiyu1210@gmail.com）

6) キーワード：twig-like MCA、血栓回収、出血性合併症

7)

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】 Twig-like MCA に合併した心原性内頸動脈終末部閉塞に対して血栓回収術を行い、有効再開通を得たものの出血性合併症を伴った症例を報告する。【症例】 75 歳男性。患者は右内頸動脈終末部閉塞を呈して来院し、術者らは a direct aspiration first pass technique にて有効再開通を得た。閉塞部の末梢の MCA は Twig-like MCA であったが、術者らは中大脳動脈 M1 に血栓が残存したと考え手技を継続し、microguidewire の穿孔による無症候性くも膜下出血をきたして手技を終了した。【結論】 Twig-like MCA に主幹動脈閉塞を伴う症例に血栓回収術を行う場合は、末梢に機器をすすめることが困難でかつ出血性合併症のリスクを伴う。

【緒言】 Twig-like MCA(Middle Cerebral Artery)は比較的稀な entity である¹⁾。Twig-like MCA は出血性脳卒中・虚血性脳卒中両者の原因となるが、Twig-like MCA に合併した主幹動脈閉塞に対して血栓回収療法を行われた例の報告は渉猟する限りこれまでにない。Twig-like MCA を有し、同側に心原性 Internal Cerebral Artery(ICA)終末部閉塞を発症し経皮的血栓回収術をおこない、再開通を得たものの出血性合併症を伴った症例を報告する。

【症例提示】 75 歳男性。既往歴・内服歴なし。発症前 mRS は 0 であった。患者は発症後約 2 時間の左麻痺を主訴に当院へ搬送された。来院時神経所見として左半身の完全麻痺・右向き共同偏視・左空間無視あり National Institute of Health Stroke Scale(NIHSS)²⁾16 点であった。来院時心電図にて心房細動を認めた。MRI では、Alberta Stroke Program Early CT Score DWI (ASPECTS-DWI)³⁾ 4 点(Figure1 A,B)であり、MRA では右 ICA 閉塞であった(Figure1 C)。FLAIR にて M1 遠位部に fluid attenuated inversion recovery vascular hyperintensity⁴⁾を認めた(Figure1 D)。DWI における信号変化はごく淡く、reversible である可能性を考えて血栓回収の方針とした。出血性合併症のリスクを考慮して Tissue Plasminogen Activator(tPA)は投与しなかった。

Optimo 9Fr(Tokai medical products, Kasugai, Aichi, Japan)にて造影すると右 ICA が眼動脈分岐部以遠で閉塞している所見であり、ICA 終末部閉塞と考えた(Figure2 A,B)。Penumbra 5AMX ACE 68(Penumbra, Alameda, CA, USA)を病変の近位部まですすめ、吸引が止まったところへ留置した。このとき microguidewire, microcatheter による病変部への lesion cross は行わなかった。Optimo の balloon を inflation して用手吸引しながら Penumbra を回収すると赤色血栓を認めた。造影すると modified Thrombolysis in Cerebral Infarction(mTICI)⁵⁾2b の有効再開通を得ていた(Figure2 C,D)。この時点で有効再開通であるものの、術者らは M1(middle cerebral artery 1st segment)近位部に血栓

が残存していると考え手技を続行した。Optimo/Penumbra 5MAX ACE68/Marksman(Medtronic, Minneapolis, MN, USA)/CHIKAI black soft tip 14(Asahi intecc, Nagoya, Aichi, Japan)にて M1 近位部にあると考えた病変に microguidewire にて lesion cross を試みた結果、perforation し(Figure3 A)少量の extravasation を認めた(Figure3 B)。ニカルジピンによる降圧、プロタミン 50mg による抗凝固の中和を行い数分待機して再度撮影すると extravasation は消失した。cone-beam computed tomography を撮影すると少量の Subarachnoid hemorrhage(SAH)を認めた(Figure3 C)。ここで術者らは M1 に明かな血栓がないこと、twig-like MCA であることを確認して手技を終了した(Figure3 D,E,F)。Puncture to Recanalization (P2R)は 28 分であった。第 2 病日の頭部 MRI では ASPECTS-DWI 2 点(Figure4 A,B)であり、MRA にて ICA 閉塞は解除されていた(Figure4 C)。NIHSS は術前と変わりなく 16 点であった。脳梗塞は心房細動があることから心原性であると考えられた。患者は第 8 病日に誤嚥性肺炎となり、気管内挿管・人工呼吸器管理・抗菌薬投与が行われたが第 13 病日に死亡した。

なお、この症例報告に際し所属施設の倫理委員会の承認を受けた(承認番号 258)。

【考察】MCA の正常変異は比較的少ない。その中でも twig-like MCA (unfused MCA、rete MCA と呼ばれる) は比較的稀である¹⁾。複数の名称で報告されているが本稿ではこの病態を”twig-like MCA”と呼称する。Twig-like MCA の自然歴は不明である点が多く、その発症率を報告は、0.11%⁶⁾、1.17%⁷⁾などと報告されている。なお MCA の他の正常変異である accessory MCA は 0.3-4.0%^{8) 9)}、duplicated MCA は 0.2-2.9%^{8) 9)}、fenestrate MCA は 0.26%⁸⁾と報告されており、twig-like MCA は MCA の正常変異のなかでも比較的稀であると言える。

Twig-like MCA の過去の報告に共通する画像所見上の特徴は 1)片側 MCA に見られる steno-occlusive lesion である、2)MCA 本幹の代わりに叢状の動脈 network が存在す

る、3)perforator は plexiform arterial network から出現する、4)閉塞した MCA より末梢の皮質枝は順行性で正常な形態である¹⁰⁾というものがあり、本症例は 4 つの特徴をすべて満たす。Twig-like MCA の病態生理はよく知られていない。原始的な叢状の MCA が大人と同様の形態を持つ過程で fusion と regression になんらかの異常が起きることで twig-like MCA ができるのではないかと考えられている¹⁰⁾。Twig-like MCA は出血性脳卒中・虚血性脳卒中どちらの原因ともなるが、twig-like MCA の同側に急性 ICA 閉塞を合併し血栓回収を行った報告は渉猟する限りこれまでにない。Twig-like MCA に伴う同側近位部主幹動脈閉塞に対する経皮的血栓回収術において最も重要なことは Twig-like MCA という病態を認識することである。近年主幹動脈閉塞に対する a direct aspiration first pass technique(ADAPT)¹¹⁾の有用性が報告されている¹²⁾。本症例のような病変の遠位部血管が細く plexal である症例に対しては lesion cross を要さない ADAPT は有効である可能性がある。本症例において、術者らは ADAPT による first pass 後の血管撮影(Figure2)で Twig-like MCA の存在を認識し、手技を終了すべきであった。

Twig-like MCA は渉猟する限り両側の報告はなく、血栓回収の術前に MRA などの血管評価における対側 MCA の形態から twig-like MCA であると判断することが難しい可能性が高い。しかし、術前に血管外径を評価する姿勢があれば twig-like MCA と分らずとも”病変やその遠位部の血管が細く、microguidewire や microcatheter での lesion cross が難しい可能性がある”と認識した上で経皮的血栓回収術を行える可能性がある。3D-constructive interference in steady state (CISS)などの heavy T2WI で血栓部位周辺を評価することで血管外径が判断できる可能性があることを示唆する報告がある¹³⁾。しかし通常の脳卒中急性期で heavy T2WI による評価を行う施設は少ないと思われる。本症例では heavy T2WI にて血管の外径を評価することを術前に行っておらず、術前に twig-like MCA であることは想定できていなかった。

最後に脳主幹動脈閉塞部位の遠位部に Twig-like MCA 以外の血管異常を合併する症例について検討する。主幹動脈閉塞症例において、手技中に判明した閉塞部位の遠位に未破裂脳動脈瘤を伴う頻度は 0.8(1/124)¹⁴⁾-1%(3/300)¹⁵⁾、血栓回収中に動脈瘤破裂による出血性合併症を認めた症例は 0.3(1/300)¹⁵⁾-0.8%(1/124)¹⁴⁾と報告されている。手技中に閉塞部遠位に動静脈奇形やもやもや血管を認めた報告は渉猟する限りない。主幹動脈閉塞に血管異常を合併する症例は比較的稀ではあるが存在することを認識し、病変遠位部の血管解剖に十分注意を払う必要がある。場合によっては、例え有効再開通が得られなくても安全性を優先して手技を中断した方が良い可能性がある。

【結語】 Twig-like MCA は比較的稀な疾患でありその病態は正確に分かっていない。今回 Twig-like MCA の同側近位部に発症した心原性 ICA 終末部閉塞に対して経皮的血栓回収を行い、有効再開通を得たが出血性合併症をきたした症例を報告した。Twig-like MCA の近位部に主幹動脈閉塞を伴う症例に対して経皮的血栓回収術を行う場合は、閉塞遠位部の microguidewire, microcatheter の誘導が困難でかつ出血性合併症のリスクを伴う。治療の際には Twig-like MCA という病態を認識することが重要である。

【利益相反開示】 筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

【文献】

1. Cho, K.C., J.J. Kim, C.K. Jang, et al., *Rete middle cerebral artery anomalies: a unifying name, case series, and literature review*. J Neurosurg, 2018. **131**: 453-461.
2. Lyden, P.D., M. Lu, S.R. Levine, et al., *A modified National Institutes of Health Stroke Scale for use in stroke clinical trials: preliminary reliability and validity*. Stroke, 2001. **32**: 1310-7.

3. Hirai, T., M. Sasaki, M. Maeda, et al., *Diffusion-weighted imaging in ischemic stroke: effect of display method on observers' diagnostic performance*. Acad Radiol, 2009. **16**: 305-12.
4. Azizyan, A., N. Sanossian, M.A. Mogensen, et al., *Fluid-attenuated inversion recovery vascular hyperintensities: an important imaging marker for cerebrovascular disease*. AJNR Am J Neuroradiol, 2011. **32**: 1771-5.
5. Zaidat, O.O., A.J. Yoo, P. Khatri, et al., *Recommendations on angiographic revascularization grading standards for acute ischemic stroke: a consensus statement*. Stroke, 2013. **44**: 2650-63.
6. Liu, H.M., D.M. Lai, Y.K. Tu, et al., *Aneurysms in twig-like middle cerebral artery*. Cerebrovasc Dis, 2005. **20**: 1-5.
7. Seo, B.S., Y.S. Lee, H.G. Lee, et al., *Clinical and radiological features of patients with aplastic or twiglike middle cerebral arteries*. Neurosurgery, 2012. **70**: 1472-80; discussion 1480.
8. Crompton, M.R., *The pathology of ruptured middle-cerebral aneurysms with special reference to the differences between the sexes*. Lancet, 1962. **2**: 421-5.
9. Komiyama, M., H. Nakajima, M. Nishikawa, et al., *Middle cerebral artery variations: duplicated and accessory arteries*. AJNR Am J Neuroradiol, 1998. **19**: 45-9.
10. Uchiyama, N., *Anomalies of the Middle Cerebral Artery*. Neurol Med Chir (Tokyo), 2017. **57**: 261-266.
11. Turk, A.S., D. Frei, D. Fiorella, et al., *ADAPT FAST study: a direct aspiration first pass technique for acute stroke thrombectomy*. Journal of neurointerventional surgery, 2014. **6**: 260-4.
12. Turk, A.S., 3rd, A. Siddiqui, J.T. Fifi, et al., *Aspiration thrombectomy versus stent*

retriever thrombectomy as first-line approach for large vessel occlusion (COMPASS): a multicentre, randomised, open label, blinded outcome, non-inferiority trial. Lancet, 2019. **393**: 998-1008.

13. Komiyama, M., T. Ishiguro, M. Nishikawa, et al., *Constructive interference in steady state imaging of moyamoya disease.* Neurol Med Chir (Tokyo), 2002. **42**: 11-6; discussion 17.
14. Zhou, T., T. Li, L. Zhu, et al., *Endovascular Thrombectomy for Large-Vessel Occlusion Strokes with Preexisting Intracranial Aneurysms.* Cardiovasc Intervent Radiol, 2018. **41**: 1399-1403.
15. Zibold, F., J.F. Kleine, C. Zimmer, et al., *Aneurysms in the target vessels of stroke patients subjected to mechanical thrombectomy: prevalence and impact on treatment.* Journal of neurointerventional surgery, 2016. **8**: 1016-20.

【図表の説明】

Figure1：発症時 MRI. Diffusion Weighted Imaging(DWI)にて Diffusion Weighted Imaging Alberta Stroke Program Early CT Score (DWI-ASPECTS)4点であり (A, B) , MRA では右内頸動脈閉塞の所見であった(C), fluid attenuated inversion recovery (FLAIR)にて右 Middle Cerebral Artery(MCA)が細く high intensity に描出されている(D)。

Figure2：血栓回収時血管撮影。血栓回収施行前の血管造影正面、側面像である(A, B)。血栓は内頸動脈眼動脈分岐部以遠に存在する。1pass 後の血管造影正面、側面像である(C, D)。内頸動脈終末部の血栓は回収できたが M1 近位部に血栓があると考えられ手技が続行された。

Figure3: 血管造影正面像にて、M1 近位部の血栓に Lesion cross する際 microguidewire が perforation を起こしてしまい(A)、造影すると extravasation を認める(B)。CT like image では少量の Subarachnoid hemorrhage を認める(C)。3D 撮影では ICA 終末部は保たれているものの、中大脳動脈 M1 近位部から plexal な血管となり、遠位の血管は通常の状態である。最終造影の正面・側面像・3次元再構成 Maximum Intensity Projection(MIP)像 (D, E, F) である。TICI2b と判断された。

Figure4: 第2病日に撮影された DWI である。ASPECTS-DWI では2点である(A, B)。MRA にて右内頸動脈終末部閉塞は解除されている(C)。

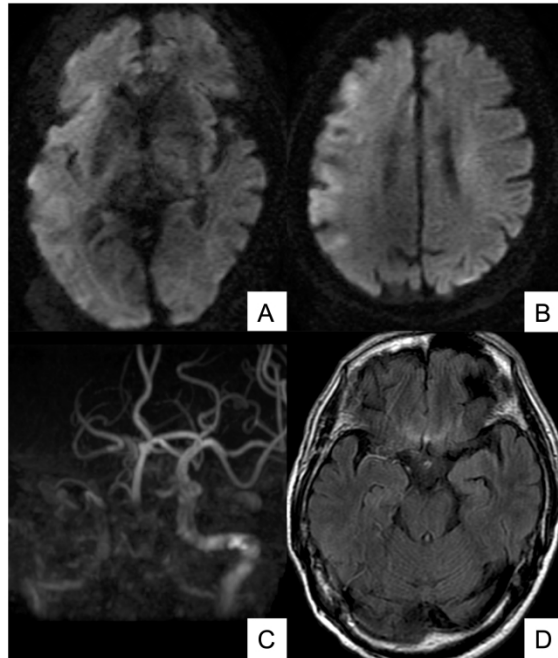


Figure1

254x190mm (500 x 500 DPI)

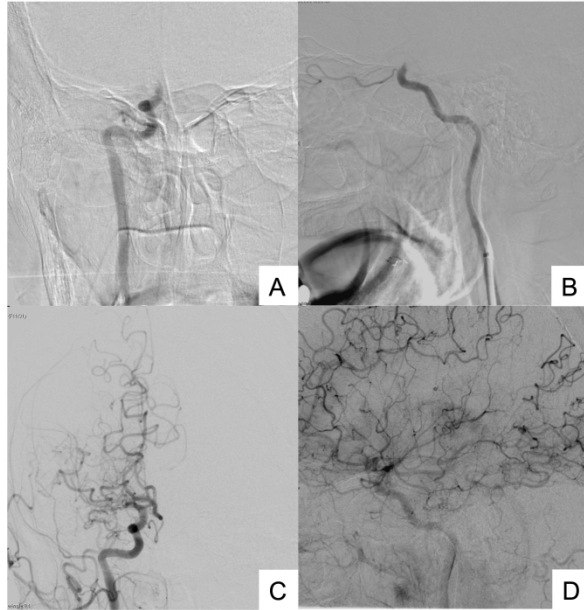


Figure2

254x190mm (500 x 500 DPI)

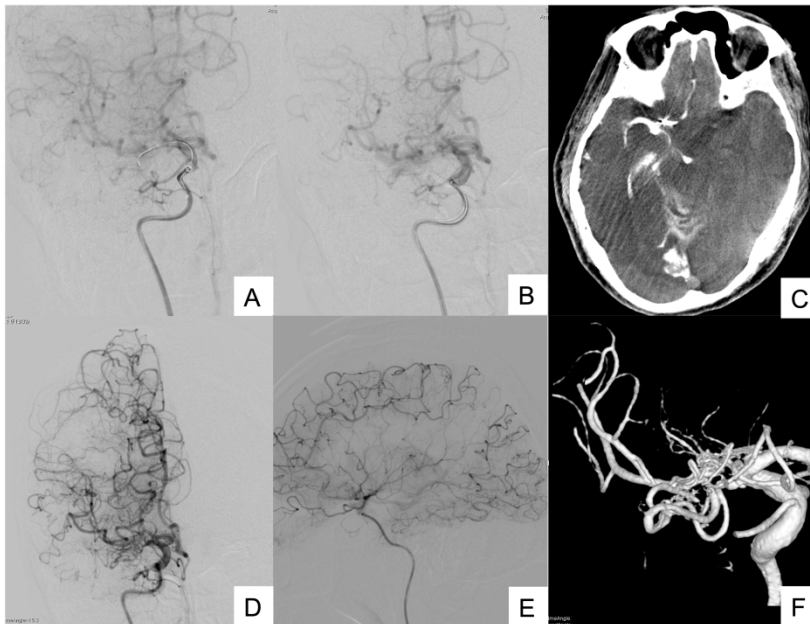


Figure3

254x190mm (500 x 500 DPI)

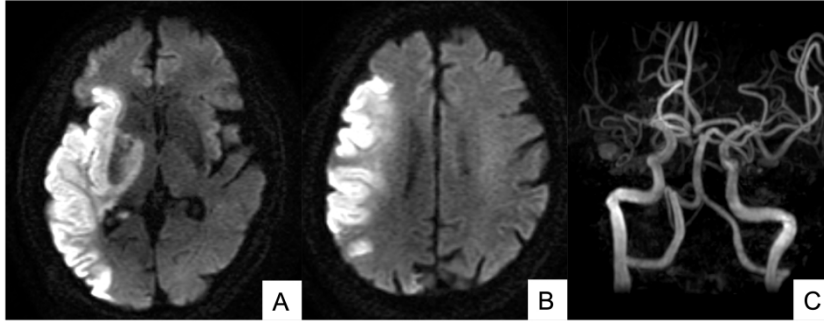


Figure4

254x190mm (500 x 500 DPI)