

〈原 著〉 第53回日本赤十字社医学会総会 優秀演題

## 2度の緊急血管内治療を行った肺動静脈瘻による奇異性脳塞栓症の1例

熊本赤十字病院 初期臨床研修医<sup>1)</sup>、熊本赤十字病院 神経内科<sup>2)</sup>  
堀 愛莉花<sup>1)</sup> 杉村勇輔<sup>2)</sup> 波止聡司<sup>2)</sup> 進藤誠悟<sup>2)</sup> 和田邦泰<sup>2)</sup> 寺崎修司<sup>2)</sup>

A case of repeated acute thrombectomy for paradoxical cerebral embolism with pulmonary arteriovenous fistula

Erika HORI<sup>1)</sup>, Yusuke SUGIMURA<sup>2)</sup>, Satoshi NAMITOME<sup>2)</sup>,  
Seigo SHINDO<sup>2)</sup>, Kuniyasu WADA<sup>2)</sup>, Tadashi TERASAKI<sup>2)</sup>

Junior resident, Japanese Red Cross Kumamoto Hospital<sup>1)</sup>  
Department of Neurology, Japanese Red Cross Kumamoto Hospital<sup>2)</sup>

Key Words : 奇異性脳塞栓症、肺動静脈瘻、脳血管内治療

## 【症 例】

患者 : 54歳、女性

主 訴 : 右上下肢麻痺、構音障害

既往歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2017年4月X日の朝6時に電話に出た際には、特に異常を認めなかったことを家族が目撃していた。その後トイレに行った際に転倒、トイレ前の廊下で倒れている患者を娘が発見した。構音障害と右片麻痺を認め救急要請、当院にへり搬送となった。

バイタルサイン : BP 138/93mmHg、HR 67回/分整、BT 36.6℃、RR 20回/分、SpO<sub>2</sub> 99% (room air)

一般身体所見 : 特記すべき異常なし

神経学的所見 : 意識レベル JCS I-1、右半側空間無視あり

脳 神 経 : 右口角下垂あり、構音障害あり

運 動 : 右上肢はかろうじて挙上可能だがすぐに下垂、右下肢は挙上・保持可能

感 覚 : 明らかな左右差なし

病的反射 : Babinski 反射右側陽性 NIHSS : 6点

血液検査 :

WBC 10,430/ $\mu$ L、RBC 422万/ $\mu$ L、Hb 13.1g/dL、Hct 37.6%、Plt 24.7万/ $\mu$ L、PT (sec) 11.4sec、APTT (sec) 25.4sec、D-dimer 1.3 $\mu$ g/mL、AT-III 104%、T-Bil 0.7mg/dL、TP 7.2g/dL、AST 20U/L、ALT 19U/L、LDH 209U/L、T-Chol 223mg/dL、TG 107mg/dL、LDL-C 137mg/dL、HDL-C 43.6mg/dL、Glu 106mg/dL、HbA1c 5.4%、Na 140mEq/L、K 4.1mEq/L、Cl 106mEq/L、CRP 0.07mg/dL、BUN

22.4mg/dL、Cre 0.58mg/dL、TSH 3.68 $\mu$ IU/mL、FT4 1.19ng/dL、BNP 18.6pg/mL、PC 抗原 112%、PS 抗原 87%、抗カルジオリピン抗体<1.2U/mL、LAC 1.08、抗核抗体<40倍、抗 dsDNA 抗体<10IU/mL、CEA 1.5ng/mL、CA19-9 22.1U/mL  
頭部 CT (図1) : 左 hyperdense MCA sign 陽性、左レンズ核に低吸収域あり、CT-ASPECTS : 9点。  
頭部 MR (図2) : DWI で右小脳半球、左被殻、放線冠に高信号あり。T2 FLAIR で左シルビウス裂から上方に hyper intense vessel sign、T2\* WI で左中大脳動脈に栓子信号あり。MRA で左中大脳動脈起始部が閉塞。

入院後経過 : 最終未発症時刻から233分で禁忌なく適応時間内であったため rt-PA を静注し、加えて緊急血栓回収術 (図3) を施行、Penumbra 5MAX ACE で ADAPT を行い1Pass で TICI3の再開通を得た (穿刺~再開通31分、最終未発症時刻~再開通296分)。NIHSS は1点まで改善した。X + 2日よりヘパリン投与開始し APTT 57.2秒と十分延長していたが、X + 2日に右片麻痺と構音障害が再発し NIHSS 15点であった。MRA (図4) で左内頸動脈先端部閉塞を認め、再度血栓回収術 (図5) を施行、内皮障害も懸念されたため前回より小径の Penumbra4MAX で3Pass し TICI2b の再開通 (穿刺~再開通81分、最終未発症時刻~再開通246分) であった。NIHSS は1点まで改善した。術翌日の脳血管造影では再狭窄や閉塞は認めず、バイアスピリン200mgを追加投与、ヘパリンを APTT コントロールしながら再開した。その後の精査で下肢静脈

超音波検査（図6）にてヒラメ静脈内血栓を、胸部造影CT（図7）で肺動静脈瘻を認め、奇異性脳塞栓症と診断した。肺動静脈瘻に対してX+9日にコイル塞栓術を施行し、X+10日よりバイアスピリン及びヘパリンを中止し、リバーロキサバン15mg/日の内服を開始した。以降、再発なく経過し、X+16日に転院となった。転院時のNIHSSは1点（右顔面軽度麻痺）で、その他に軽度の注意機能障害を認めるのみであった。

## 【考 察】

肺動静脈瘻の日本における有病率は10万人あたり38人と報告されている<sup>1)</sup>。肺動静脈瘻の患者においては、有症状の脳梗塞を18%、一過性脳虚血発作を37%に合併し、頭部CT所見上は36%に脳梗塞所見が認められると報告があり、脳梗塞は決して珍しい合併症ではない<sup>2)</sup>。しかし、本症例の様に肺動静脈瘻により奇異性脳塞栓症を来し、緊急血管内治療を施行、さらに急性期に再発し再治療を行った症例の報告は検索しうる限り認められなかった。

一般に、肺動静脈瘻により脳梗塞を来す機序としては、深部静脈血栓症による奇異性脳塞栓症や、肺動静脈瘻内血栓による塞栓症が報告されている<sup>3)</sup>。しかし、本症例では再発を来した機序は①脳塞栓症が偶然同一部位に生じた、②機械的血栓除去術による血管内皮障害のため血栓が生じた、のいずれかであると推測された。2度目の血管内治療翌日の脳血管造影検査では明

らかな血管狭窄は指摘できず、経過からは内皮障害よりも塞栓性機序による再発であった可能性が高いと考えたが、実際の原因は明らかでなかった。その後の外来経過でも再発を認めず経過は良好であるため、肺動静脈瘻の塞栓術と抗凝固療法が適切な治療と考えたが、病態解明のためには今後も症例の蓄積が必要である。

## 【おわりに】

肺動静脈瘻に起因する奇異性脳塞栓症に対して血管内治療を施行した後、急性期に再発を来した1例を経験した。本症例では再発後も治療が奉功したが再発機序は不明であった。肺動静脈瘻を介した奇異性脳塞栓症では、抗凝固療法が充分であっても再発しうる可能性を充分念頭に置くべきである。

## 【引用文献】

- 1) Masayuki Nakayama, Takeshi Nawa et al : Prevalence of Pulmonary Arteriovenous Malformations as Estimated by Low-Dose Thoracic CT Screening. *Internal Medicine* 13 : 1677-1681, 2012
- 2) White RI Jr, Lynch-Nyhan A et al : Pulmonary arteriovenous malformations : techniques and long-term outcome of embolotherapy. *Radiology* 169 : 663-9, 1988
- 3) Devuyt G, Bogousslavavsky J : Pulmonary arteriovenous fistula. In : *Uncommon causes of stroke*, First ed, by Bogousslavavsky J and Caplan L, Cambridge University Press : 198-205, 2001



図1 (a)

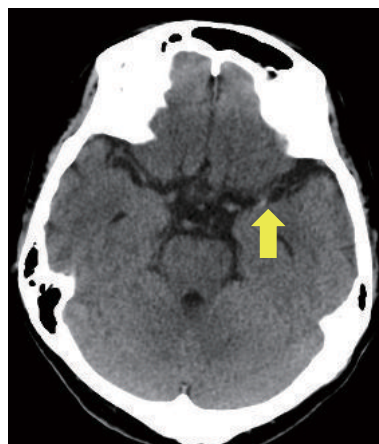


図1 (b)



図1 (c)

- 図1 発症当日の頭部CT画像  
 図1(a)、(b) 左 hyperdense MCA sign 陽性  
 図1(c) 左のレンズ核領域が低吸収となっている

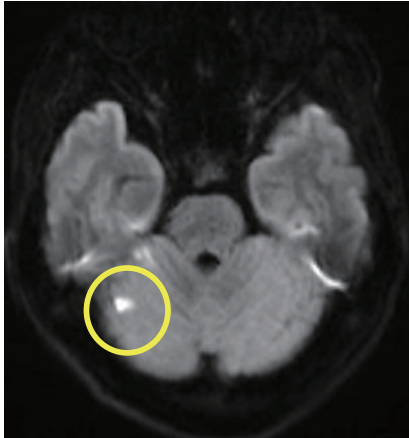


図2 (a)

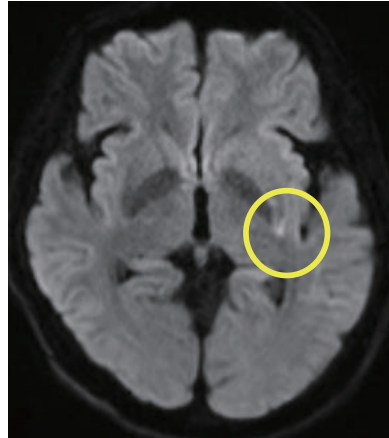


図2 (b)

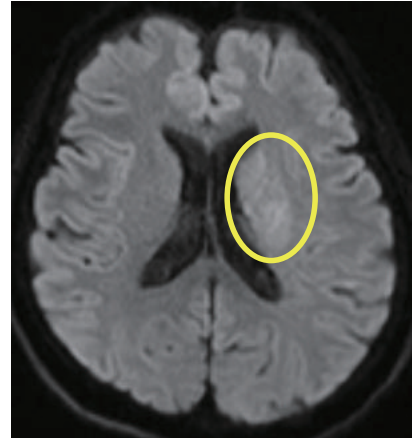


図2 (c)

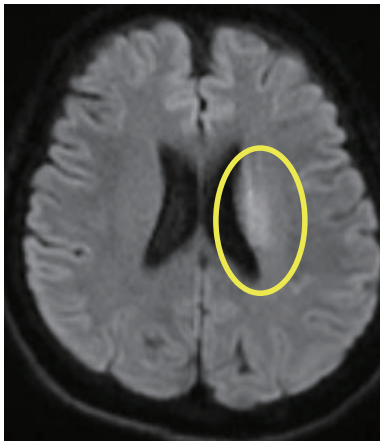


図2 (d)

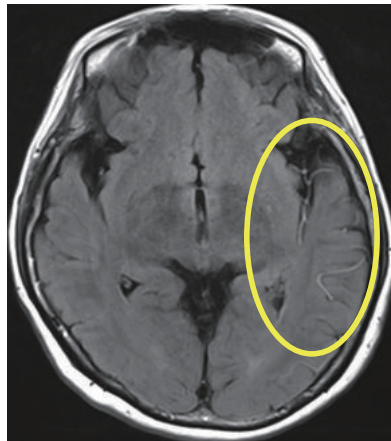


図2 (e)

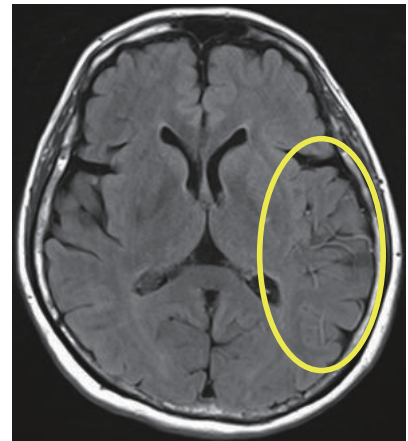


図2 (f)

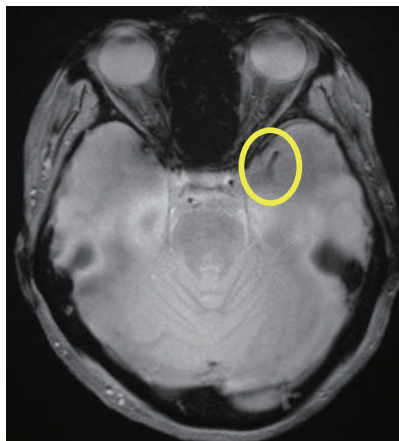


図2 (g)

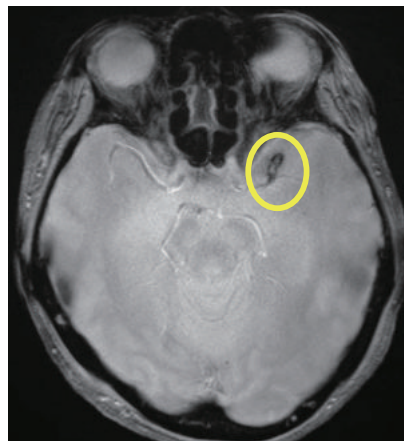


図2 (h)

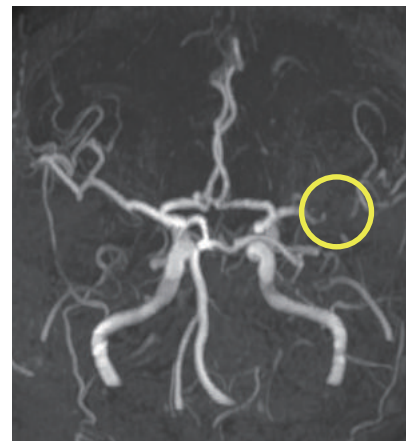


図2 (i)

図2 発症当日の頭部 MR 画像（最終未発症時刻から204分後）  
 図2 (a)～(d) DWI にて右小脳半球、左被殻、放線冠に高信号あり  
 図2 (e)、(f) FLAIR で左 Sylvius 裂から上方に Hyper intense vessel sign あり  
 図2 (g)、(h) T2\* で左中大脳動脈に栓子信号あり  
 図2 (i) MRA で左中大脳動脈 M1 の閉塞あり



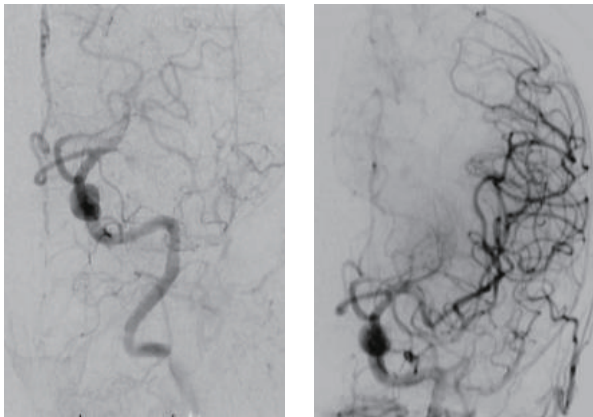


図3 (a)

図3 (b)

図3 (a) 治療前の左内頸動脈造影、左中大脳動脈 M1 閉塞

図3 (b) 治療後の左内頸動脈造影、TICI3の再開通

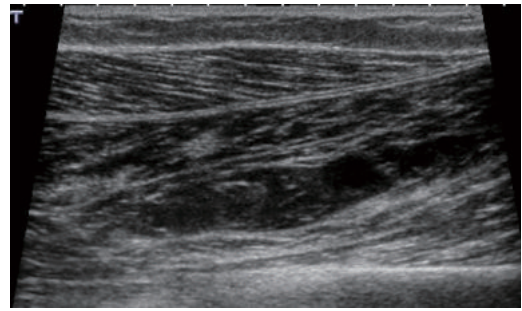


図6 (a)

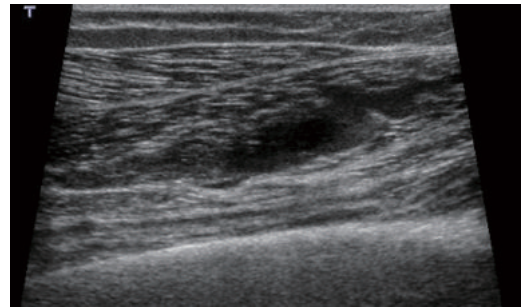


図6 (b)

図6 (a) 右ヒラメ静脈超音波検査画像

図6 (b) 左ヒラメ静脈超音波検査画像

両側ヒラメ静脈に内部エコー不均一な亜急性期と考えられる血栓を認める

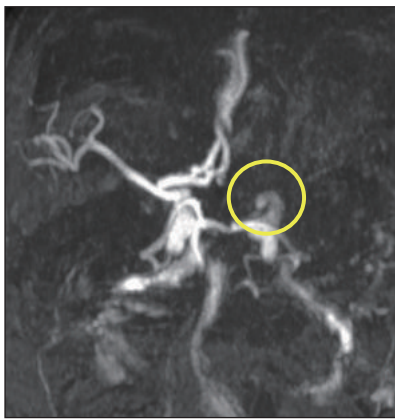


図4

図4 再発時の MRA 画像(最終未発症時刻から147分後) 左内頸動脈先端部閉塞

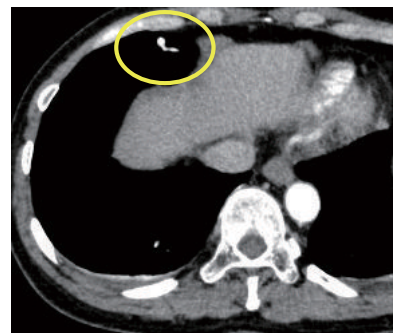


図7 (a)

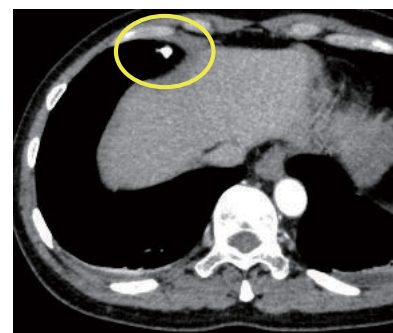


図7 (b)

図7 (a)、(b) 胸腹部造影 CT 画像 右肺中葉 S5末梢に肺動静脈瘻を認める 肺塞栓症やその他の塞栓症は指摘できない

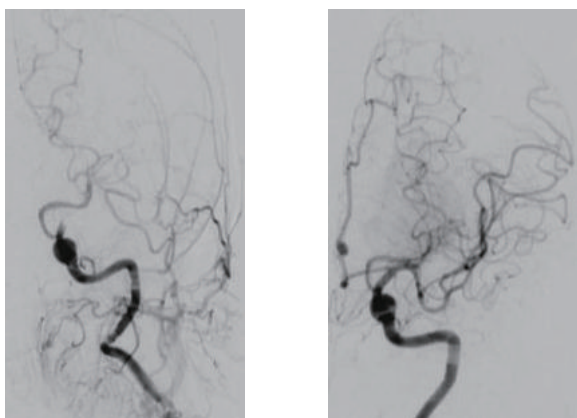


図5 (a)

図5 (b)

図5 (a) 再発時治療前の左内頸動脈造影、左内頸動脈先端部閉塞

図5 (b) 再発時血管内治療後の左内頸動脈造影、TICI2bの再開通