◆ 症例報告 ◆

急性期血行再建術時に存在が疑われた
carotid web の確定診断と根治治療に至った 1 例

福本 博順^{1,2)} 吉永 貴哉¹⁾ 森下 登史²⁾ 福田 健治²⁾ 安部 洋²⁾
佐藤 公則¹⁾ 東 登志夫³⁾ 河野 義久¹⁾ 井上 亨²⁾

要旨：症例は41歳の女性で、10年前に左中大脳動脈閉塞症を発症し、その後も複数回にわたり右上下肢の脱力や構音障害を自覚していた。今回、再度左中大脳動脈閉塞症を発症し、血栓回収療法中に carotid web を発見した。その後、再発予防を目的に頸動脈ステント留置術を行った。特に若年における危険因子のない脳梗塞において、carotid web は鑑別すべき重要な疾患と考えられた。

Key words: carotid web, carotid artery stenting, thrombectomy, black blood method

背 景

“Carotid web”とは内頸動脈起始部後壁に血管内腔に突出する構造物である。その膜様構造は血流停滞を伴う乱流を形成し、同部位にできた血栓が脳塞栓症を合併すると言われている。Carotid web の正確な有病率は不明であるが、carotid web を有する症例の48%が脳梗塞を、34%が一過性脳虚血発作を発症すると言われており¹⁾、また塞栓源不明脳梗塞の21%に carotid web を認めた²⁾との報告もあり、虚血性脳血管障害のリスク因子と考えられている。Carotid web を発見・治療できた症例は限られており、病態については不明な部分が多く、治療法は確立していない。今回、我々は carotid web に起因する急性期中大脳動脈閉塞症に対して血栓回収療法を行い、再発予防を目的に頸動脈ステント留置術を行って良好な転帰が得られた症例を経験したため、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：41 歳女性

主訴：意識障害、右上下肢麻痺

現病歴：31 歳時に右上下肢麻痺を主訴に当院を受診し、頭部 Magnetic Resonance Angiography (MRA) で左中大脳動脈 (M2) 閉塞症が認められたものの (Fig. 1A)、自然再開通し症状は改善した。各種の精査が行われたが塞栓源不明脳梗塞と判断され、抗血栓薬の服薬はされず経過観察されていた。その後も時折、一過性の右上下肢脱力や構音障害などが出現していた。その10年後である今回、新たに意識障害とけいれん、右上下肢麻痺を起こしたため、救急搬送された。最終安否確認は発症7時間前であった。

既往歴：31 歳時の中大脳動脈閉塞症の他に特記すべきものはない。

服薬歴：なし

嗜好歴：喫煙なし、飲酒なし

入院時現症：血圧 123/81 mmHg、脈拍 80 回/分・整。意識レベル JCS 200、右上下肢麻痺、左共同偏視を認め、National Institutes of Health Stroke Scale (NIHSS) 29 点であった。

入院時検査所見：心電図では心房細動を含め、明らかな異常所見なし。血液生化学検査では、D-dimer 1.2 µg/ml (正常 0~1.0)、T-cholesterol 221 mg/dl (正常 150~219)、TG 173 mg/dl (正常 50~149)、HDL-C 47 mg/dl (正常 40~90)、LDL-C 139 mg/dl (正常 70~139)、随時血糖 137 mg/dl (正常 70~109)、HbA1c 5.5 % (正常 4.6~6.2)。その他に特記すべき異常所見なし。頭部 Computed Tomography (CT) で明らかな異常所見は認めなかった。頭部 Magnetic

¹⁾久真会河野脳神経外科病院脳神経外科

²⁾福岡大学医学部脳神経外科

³⁾福岡大学筑紫病院脳神経外科

責任著者：〒814-0180 福岡県福岡市城南区七隈 7-45-1

福岡大学医学部脳神経外科 福本博順

E-mail: h.fukumoto@fukuoka-u.ac.jp

(2020 年 9 月 6 日受付, 2020 年 9 月 27 日受理)

doi: 10.3995/jstroke.10854

Fig. 1 Magnetic resonance imaging studies and mechanical thrombectomy

- A: Magnetic resonance angiography (MRA) of the head ten years ago shows left middle cerebral artery (M2) occlusion (arrow head).
 B: Diffusion-weighted magnetic resonance image (MRI) on admission shows no ischemic lesion. MRI ASPECTS 11/11
 C: MRA on admission shows left middle cerebral artery (M1 distal) occlusion, which is the same lesion as shown in Fig.1A (arrow head).

Fig. 2 Carotid web shown by multiple imaging modalities

- A: Early left common carotid artery (CCA) angiogram shows that a linear filling defect (arrow head) was noted along the proximal wall of the left ICA in the arterial phase.
 B: Left CCA angiogram shows that stagnation of the contrast medium was apparent in the late venous phase.
 C: Left CCA 3-dimensional (3D) rotational angiography shows carotid web (arrow head).
 D: 3D-computed tomography angiography (CTA) shows carotid web (arrow head).
 E: Left neck MRI 3D fast spin echo T1-weighted imaging black-blood method shows carotid web (arrow head).

Resonance Imaging (MRI) 拡散強調画像では虚血巣はなく、頭部 MRA では左中大脳動脈 (M1 distal) が閉塞していた (Fig. 1B, C)。

Recombinant tissue-type Plasminogen Activator (rt-PA) 静注療法は最終安否より 7 時間が経過しており、適応外と判断し、血栓回収術を施行した。総頸動脈造影で内頸動脈起始部に突出する病変あり、一部血流が鬱滞していた (Fig. 2A, B)。Carotid web と判断して、ガイドイングカテーテルを慎重に内頸動脈に誘導し、吸引カテーテルを用いて血栓回収を行った。One pass で完全再開通を得られ、術直後より NIHSS 0 点へと神経学的改善が認められた。

術後頭部 CT で出血性合併症はなく、術後エダラボ

ン、ヘパリンによる点滴加療とアスピリン 100 mg/day による抗血小板療法を開始した。術翌日の頭部 MRI では左基底核に梗塞巣を認めたが、神経学的脱落はなかった。入院中に、心エコー、ホルター心電図、各種血液検査 (凝固異常、膠原病およびプロテイン C/S 欠損など) を行い、心原性および奇異性塞栓の可能性は否定的であると判断した。頸動脈エコーでは異常所見を検出できなかったが、頸動脈造影 CT および頸動脈 MRI 3 dimensional (3D) T1 weighted imaging black-blood 法で頸動脈起始部 C3 level に血管内部に突出する notch を検出できたことから、carotid web の確定診断に至った (Fig. 2D, E)。

10 年前に同一血管領域に塞栓症を起こしていること、また経過中に左内頸動脈の灌流領域障害による神経

Fig. 3 Angiographic findings during stenting procedure

- A: Placed carotid Wallstent
 B: Left CCA angiogram early phase post-stenting
 C: Left CCA angiogram late-phase post-stenting
 D: Left neck MRI black-blood method shows thrombosis (arrow head).
 E: 3D-CTA shows no blood cavity out of stent.

症状を複数回発症していることから、carotid web に起因する塞栓症を繰り返していることが推測された。そのため、再発予防目的に頸動脈ステント留置術を企図した。

ヘパリン、アスピリンに加え、術1週間前よりクロピドグレル 75 mg/day を追加投与した。救急搬送後14日目に頸動脈ステント留置術を局所麻酔下に施行した。左大腿動脈に8Fr シースを留置後、8Fr ガイディングカテーテルを左総頸動脈に誘導した。内頸動脈をフィルタープロテクションし、ステント (Carotid WALLSTENT, Boston Scientific, Marlborough, MA, USA) を留置し、手技を終了した (Fig. 3A–C)。

術翌日の頸動脈エコーでステント外スペースに血流信号がないことを、また頸部 MRI T1WI black-blood 法で carotid web の血流腔と一致する部位に血栓化像を認めた (Fig. 3D)。術後3日目の3D-CTAでステント外スペースに造影剤流入がないこと (Fig. 3E) を確認し、術後4日目に退院とした。ステント術後3カ月以上再発は認めおらず、経過は良好と考えられた。

本症例は、患者本人より論文投稿に関して同意を得た。

考 察

今回我々は、頭蓋内主幹動脈閉塞症に対し機械的血栓回収術を行った際に carotid web を疑い、画像検査から正確な診断を得ることで待機的にステント留置術を行って、良好な結果を得ることができた。

“Carotid web” は、1965 年に Connett らによって “fibromuscular hyperplasia” として初めて報告され³⁾、その後

1973 年に Momose らによって “carotid web” という言葉が初めて用いられた⁴⁾。内頸動脈起始部後壁において血管内腔に突出する構造物を指し、膜様構造によって病変の吻側に血流停滞を伴う乱流が形成され、そこにできた血栓によって脳梗塞を発症すると言われている⁵⁾。自験例でも血管撮影の late phase において、同部位に乱流と血流の鬱滞が認められた。

Carotid web の病理学的所見は線維性の肥厚した内膜を呈しており、一般的な動脈硬化性病変と比べて動脈硬化性変化に乏しく、線維化および平滑筋細胞の過形成像をもった fibromuscular dysplasia の亜型として以前より考えられている。Wang らが両側性病変を 14.7% に認めたと報告していることも、これを支持しているものと考えられる¹⁾。一方で、川原らの報告によれば、軽度～中等度の内膜肥厚を呈し線維性プラークを主体とする、いわゆる一般的な動脈硬化性変化を呈する症例もある⁶⁾。なお、本症例では対側の総頸動脈撮影は正常所見で両側性病変でないことが確認されている。

文献上、症候性 carotid web の平均年齢は 38～51 歳で、女性、黒人に多いと言われている^{2, 7)}。Carotid web の正確な有病率は不明であるが、Coutinho らは動脈瘤、脳動静脈奇形、脳出血の患者に対して撮影した頭頸部 CTA で 1% に⁷⁾、Zhou らは頭頸部 CTA を撮影した患者の 0.54% に carotid web を認めたと報告している⁸⁾。Wang らは、carotid web を有する患者の 48% が脳梗塞を、34% が一過性脳虚血発作を発症したと報告している¹⁾。Coutinho らは塞栓源不明の前方循環脳梗塞患者に

において 60 歳未満の 9.4% に⁷⁾, Sajedi らは 55 歳未満の塞栓源不明の脳梗塞患者の 21.2% に carotid web が認められた²⁾と報告している。さらに Compagne らは、血行再建術を必要とする急性期頭蓋内主幹動脈閉塞症例の 2.5% に carotid web を認めたと報告している⁹⁾。このように、carotid web は若年から中年の、特に女性において塞栓源不明の脳梗塞の重要な原因と考えられている。自験例も、carotid web の他には脳梗塞のリスクファクターのない若年女性患者であったことから、典型例だったと考えられる。

診断は脳血管造影検査が頻用され、自験例のように造影剤の停滞が carotid web の吻側で認められることで診断される。最近では 3D-CTA maximum intensity projection 画像の矢状断を用いることで carotid web を鮮明に描出している報告が多い⁵⁾。病変自体が小さいため、超音波や頸部 MRA などは sensitivity が低いと言われているが⁸⁾、頸動脈エコーで carotid web を検出できたものや^{10, 11)}、high resolution MRA や CINE fast spin echo 法で carotid web を描出できた報告もある¹²⁾。自験例では、頸動脈エコーや頸部 MRA での検出は困難であったが、3D T1WI black-blood 法を用いることで carotid web を検出することができた。これまでに MRI で carotid web を描出できたという報告は非常に少ないが、本症例のように 3D T1WI black-blood 法を用いることで病変検出率を上昇させることができると考えられた。このように、虚血性脳血管障害のリスクファクターをもたない塞栓症例においては積極的に頸動脈の精査を行うことが重要である。

治療法に関しては確立したものはないが、無治療で経過観察を行った場合、carotid web を有する患者の脳梗塞再発率は高いとされている。Zhang らは、抗血小板療法を行った患者の 54%、抗凝固療法を行った患者の 75% に再発を認め、外科的血行再建を行った患者では再発がなかったと報告している¹³⁾。症候化した症例は内科的加療抵抗性と考えられるため、初発でも再発予防目的の血行再建は検討されるべきであろう。従来、根本治療として頸動脈内膜剥離術の報告がされ、良好な結果が報告されてきたが、2013 年には Lenck らによって初めて頸動脈ステント留置術の報告がなされた¹⁴⁾。その後は頸動脈ステント留置術による良好な結果が繰り返し示されるようになり、自験例でも同様に良好な転帰を得ることができた。自験例において、術後は、3D-CTA および頸動脈エコーでステント外の血流腔が消失したこと、および MRI 3D T1WI black-blood 法で carotid web の血流腔に血栓化を示唆する高信号を認めたため、carotid web 吻側の血流腔は消失し、塞栓症を発症するリスクを低減できた

と判断した。

本概念が提唱されて以降、さまざまな報告がなされてきたが、ここ数年は carotid web に対する血行再建術の報告が散見される。これは、自験例のように血栓回収療法を行った際に気づかれる症例が増えていることが一因と考えられる。血栓回収療法を行う際、特に若年者の心房細動がない症例などにおいては、頸部血管撮影を撮影すること、および頸部 MRI や 3D-CTA を用いて本疾患の存在の有無を確認することが重要と考える。

結 語

Carotid web は脳卒中診療において知っておくべき病態であり、精密検査の過程において脳塞栓症の原因の一つとして疑うことを怠ってはならない。特に、若年女性で不整脈や凝固異常が認められない脳塞栓症症例においては積極的に疑い、確定診断に至った症例においては外科的治療介入による脳梗塞再発予防を検討すべきである。

著者は日本脳卒中学会への COI 自己申告を完了しており、本論文の発表に関して、開示すべき COI はない。

参考文献

- 1) Wang M, Zhou R, Zhao H, et al: Imaging and clinical features of cervical carotid web: report of 41 cases and literature review. *Acta Neurol Belg* 2020 doi: 10.1007/s13760-020-01353-y
- 2) Sajedi PI, Gonzalez JN, Cronin CA, et al: Carotid bulb webs as a cause of "cryptogenic" ischemic stroke. *AJNR Am J Neuroradiol* 38: 1399–1404, 2017
- 3) Connett MC, Lansche JM: Fibromuscular hyperplasia of the internal carotid artery: report of a case. *Ann Surg* 162: 59–62, 1965
- 4) Momose KJ, New PF: Non-atheromatous stenosis and occlusion of the internal carotid artery and its main branches. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 118: 550–566, 1973
- 5) Choi PM, Singh D, Trivedi A, et al: Carotid webs and recurrent ischemic strokes in the era of CT angiography. *AJNR Am J Neuroradiol* 36: 2134–2139, 2015
- 6) 川原一郎, 日宇 健, 小野智恵ら: Carotid web 病変の再考および治療戦略. *Neurol Surg* 47: 659–666, 2019
- 7) Coutinho JM, Derkatch S, Potvin AR, et al: Carotid artery web and ischemic stroke: A case-control study. *Neurology* 88: 65–69, 2017
- 8) Zhou F, Xu ZZ, Ji RJ, et al: [A clinical analysis of 32 patients with carotid web]. *Zhonghua Nei Ke Za Zhi* 58: 599–601, 2019 (in Chinese)
- 9) Compagne KCJ, van Es ACGM, Berkhemer OA, et al: Prevalence of carotid web in patients with acute intracranial stroke due to intracranial large vessel occlusion. *Radiology* 286: 1000–1007, 2018
- 10) Luo X, Li Z: Ultrasonic risk stratification of carotid web. *Echocardiography* 36: 2103–2107, 2019
- 11) Watanabe S, Matsumoto S, Nakahara I, et al: A case of ischemic

- stroke with congenital protein C deficiency and carotid web successfully treated by anticoagulant and carotid stenting. *Front Neurol*, 2020 doi: 10.3389/fneur.2020.00099
- 12) Boesen ME, Eswaradass PV, Singh D, et al: MR imaging of carotid webs. *Neuroradiology* 59: 361–365, 2017
- 13) Zhang AJ, Dhruv P, Choi P, et al: A systematic literature review of patients with carotid web and acute ischemic stroke. *Stroke* 49: 2872–2876, 2018
- 14) Lenck S, Labeyrie MA, Mosimann PJ, et al: Diaphragm of the internal carotid artery: a novel cause of pulsatile tinnitus. *J Neurol* 260: 2185–2187, 2013

Abstract

Diagnosis and treatment of carotid web: case report

Hironori Fukumoto, M.D.,^{1,2)} Takaya Yoshinaga, M.D.,¹⁾ Takashi Morishita, M.D., Ph.D.,²⁾
Kenji Fukuda, M.D., Ph.D.,²⁾ Hiroshi Abe, M.D., Ph.D.,²⁾ Kiminori Sato, M.D., Ph.D.,¹⁾
Toshio Higashi, M.D., Ph.D.,³⁾ Yoshihisa Kawano, M.D., Ph.D.,¹⁾ and Tooru Inoue, M.D., Ph.D.²⁾

¹⁾Department of Neurosurgery, Kawano Neurosurgery Hospital

²⁾Department of Neurosurgery, Faculty of Medicine, Fukuoka University

³⁾Department of Neurosurgery, Fukuoka University Chikushi Hospital

The present paper reports a case of a 41-year-old female. The patient developed left middle cerebral artery occlusion 10 years prior and had been aware of dysarthria and weakness in the right upper and lower limbs on several occasions. The patient again developed left middle cerebral artery occlusion, and we predicted carotid web during thrombectomy. Subsequently, carotid stenting was performed to prevent stroke recurrence. It is essential to differentiate carotid webs during cerebral infarction without risk factors, especially in young patients.

Key words: carotid web, carotid artery stenting, thrombectomy, black blood method

(Jpn J Stroke 43: 360–364, 2021)