

症例報告

総肺静脈還流異常を合併した垂直静脈狭窄に対する ステント留置中のバルーンエントラップメント

杉谷 雄一郎¹⁾, 宗内 淳¹⁾, 岩屋 悠生¹⁾, 川口 直樹¹⁾, 白水 優光¹⁾, 岡田 清吾¹⁾,
飯田 千晶¹⁾, 渡邊 まみ江¹⁾, 宮城 ちひろ²⁾, 安東 勇介²⁾, 落合 由恵²⁾

¹⁾ 独立行政法人地域医療機能推進機構 (JCHO) 九州病院小児科

²⁾ 独立行政法人地域医療機能推進機構 (JCHO) 九州病院心臓血管外科

Entrapment of a Balloon Catheter during Stent Implantation for Vertical Venous Stenosis in Two Neonates with Single Ventricle and Total Anomalous Pulmonary Venous Connection

Yuichiro Sugitani¹⁾, Jun Muneuchi¹⁾, Yuki Iwaya¹⁾, Naoki Kawaguchi¹⁾, Hiromitsu Shirouzu¹⁾,
Seigo Okada¹⁾, Chiaki Iida¹⁾, Mamie Watanabe¹⁾, Chihiro Miyagi²⁾, Yusuke Ando²⁾, and Yoshie Ochiai²⁾

¹⁾ Department of Pediatrics, Japan Community Healthcare Organization, Kyushu Hospital, Fukuoka, Japan

²⁾ Department of Cardiovascular Surgery, Japan Community Healthcare Organization, Kyushu Hospital, Fukuoka, Japan

To avoid surgical interventions in the management of neonates with single ventricle and total anomalous pulmonary venous return, stenting in the narrowing vertical vein can be performed. We report two cases of balloon entrapment during stenting in such procedures. (Case 1) A 3.5-kg boy born at 40 weeks' gestation was diagnosed with single ventricle, pulmonary stenosis, and supracardiac total anomalous pulmonary venous return. He developed pulmonary congestion, visible on chest X-ray, due to the narrowing vertical vein draining into the left superior caval vein. Soon after birth, we performed stenting (using Express SD® 6 mm) in the vertical vein with a left jugular vein approach. However, the balloon became entrapped in the stent with a waist after deflation. (Case 2) A 2.8-kg girl born at 39 weeks' gestation was diagnosed with hypoplastic left heart syndrome and supracardiac total anomalous pulmonary venous return. We performed stenting (using Express SD® 8 mm) in the vertical vein on the day after birth, approaching from the right jugular vein. However, the balloon was entrapped in the stent with a waist and we had difficulty withdrawing the balloon catheter. In both cases, the balloon catheters were able to be withdrawn by manipulation of the sheath and catheter. Balloon entrapment should be acknowledged as a possible serious complication of stenting in the non-compliant vertical vein in neonates with total anomalous pulmonary venous return.

Keywords: total anomalous pulmonary venous return, vertical vein, pulmonary venous obstruction, stent implantation, complication, balloon entrapment

近年、単心室・総肺静脈還流異常症 (TAPVR) の垂直静脈狭窄に対して、新生児早期の手術を回避すべく姑息的ステント留置が行われている。垂直静脈ステント留置に伴うバルーンエントラップメント 2 例を経験した。【症例 1】在胎 40 週 5 日、出生体重 3,552 g。単心室、肺動脈狭窄、上心臓型 TAPVR の男児。左上大静脈へ還流する垂直静脈狭窄のため出生当日肺うっ血を認め、左内頸静脈よりステント (Express SD® 6 mm) を留置した。ステントにウエストが残存した状態でバルーン回収を試みたが

2018 年 11 月 13 日受付, 2019 年 11 月 18 日受理

著者連絡先: 〒806-0034 福岡県北九州市八幡西区岸の浦 1 丁目 8-1 地域医療機能推進機構 (JCHO) 九州病院小児科 杉谷雄一郎, 宗内 淳

doi: 10.9794/jspccs.36.143

抜去困難となった。【症例 2】在胎 39 週 4 日，出生体重 2,882 g。左心低形成症候群，上心臓型 TAPVR の女児。生後 1 日目，右上大静脈へ還流する垂直静脈の狭窄に右内頸静脈よりステント（Express SD® 8 mm）を留置した。ステントのウエストが残存した状態でバルーン回収を試みたが難渋した。いずれの症例もシースやカテーテルの操作で抜去することができた。垂直静脈狭窄へのステント留置の際は，バルーンエントラップメントを憂慮すべき合併症として認識する必要がある。

緒 言

垂直静脈狭窄を伴う総肺静脈還流異常を合併した機能的単心室症例において，新生児早期の外科的治療を回避するべく，姑息的に垂直静脈ステント留置を行い，生後の肺循環の安定待機後に総肺静脈還流異常修復を行う治療方針が選択されつつある¹⁻³⁾。また，この治療戦略により総肺静脈還流異常を合併した機能的単心室の 1 年生存率が改善しつつある¹⁾。当院においても 2011 年から総肺静脈還流異常を合併した機能的単心室症例 3 例に垂直静脈へのステント留置を行った。しかし 3 例中 2 例においてステント留置中ステントの一部にウエストが残存し，回収時のバルーンカテーテルのエントラップメント（抜去困難）を生じた。成人の急性冠症候群に対する冠動脈狭窄へのステント留置時，石灰化病変が存在する場合やバルーン破裂の際にバルーンエントラップメントを生じることが知られ，注意すべき合併症の一つと認識されている^{4,5)}。小児においては，垂直静脈へのステント留置時に垂直静脈の狭窄部が硬化病変のため，ステントに部分的なウエストが残存する例が報告されている⁶⁾。バルーンエントラップメントは垂直静脈へのステント留置の際に憂慮すべき合併症の一つであり，当院において経験した 2 例を報告する。

症 例

症例 1

男児。在胎 40 週 5 日，出生体重 3,552 g，Apgar score 1 分後 8 点，5 分後 9 点で近医産科において出生した。出生直後から呼吸障害，中心性チアノーゼを認めたため出生当日に当院 NICU へ入院した。胎児診断はなかった。心拍数 120 回/分，呼吸数 40 回/分，血圧 59/34 mmHg，SpO₂ 80%（室内気）。四肢，体幹のチアノーゼがあり，肋骨弓下に軽度陥没呼吸を認めた。呼吸音に異常はなく，左右差を認めなかった。心音は II 音が単一亢進し，胸骨右縁第 4 肋間に Levine II/VI 度の逆流性収縮期雑音を聴取した。胸骨左縁上部での静脈こま音は聴取しなかった。胸部 X 線検査では右胸心，心胸郭比 49%，両側の肺うっ血，両側気胸を認めた（Fig. 1A）。経胸壁心臓超音波検査では共通房室弁口を伴う右室型単心室，肺動脈狭窄，上心臓型総肺静脈還流異常（Darling 分類 Ib 型），両側上大静脈と診断した。また軽度共通房室弁逆流を認めた。血液検査所見は白血球数 13,900/ μ L，CRP 0.05 mg/dL から感染徴候はなかった。また，末梢赤血球中に Howell Jolly 小体を認めた。血液検査で腎機能に異常がないことを確認後，入院当日に心臓造影 CT 検査を実施した。共通肺静脈腔は心房背側左上方に位置し，垂直静脈は左上大静脈へと流入する手前で屈曲・狭窄

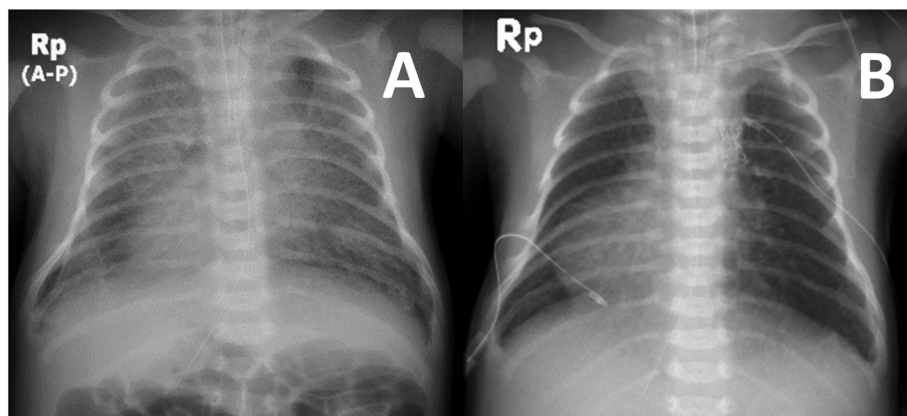


Fig. 1 Chest X-rays before (A) and in eight hours after (B) stenting of Case 1 are shown. Pulmonary congestion dramatically improves after stenting in the vertical vein

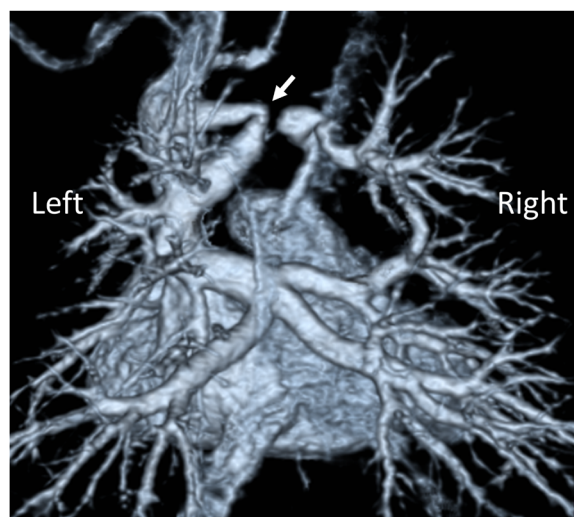


Fig. 2 Contrasted computed tomography of Case 1 is shown (a volume-rendering image)

The pulmonary veins drained not into the atrium but into the left superior caval vein via the vertical vein. The vertical vein was narrowing (arrow).

し、最狭窄部径 1.0mm であった (Fig. 2)。

両側の気胸に対する胸腔穿刺ドレナージによっても SpO₂ 74% とチアノーゼ・呼吸障害が遷延した。新生児早期の外科的治療介入回避を目的として経皮的垂直静脈ステント留置を行う方針とした。人工呼吸器管理下、ミダゾラムおよびチアミラルによる静脈麻酔下に治療を行った。左内頸静脈に 5Fr シース (15cm) を留置し、4Fr 右 Judkins カテーテル (メディキット社、東京) を親カテとしてマイクロカテーテル (Progreat® Terumo 社、東京) により選択的に垂直静脈内へカテーテルを挿入し、右下肺静脈末梢までマイクロカテーテルを進めたところで、0.018 インチガイドワイヤー (Thruway® Boston scientific 社、米国) をマイクロカテーテル内へ挿入した。屈曲していた垂直静脈はガイドワイヤーにより直線化した。5Fr シースをそのままガイドワイヤーに沿わせて垂直静脈内へ進めた。シースから造影し、狭窄部位を確認した。狭窄部の径は 2mm で、reference 径は 5.4mm であった。Express SD® (Boston scientific 社、米国) 径 6mm 長さ 14mm を 5F シース内へ挿入し、繰り返し造影により位置確認を行った後に、14 気圧で加圧し留置した。留置後ステント中央にウエストが残存した。ステントがマウントされていたバルーンで追加拡張を行ったものの、狭窄部は硬化病変でありウエストは残存した。バルーンカテーテルをデフレーションし陰圧をかけた状態でシース内に引き込もうとした

が、バルーン先端がステント内にエンタラップされた (Fig. 3)。バルーンカテーテルに沿ってスネアカテーテルの挿入を試みたが狭窄部をスネアカテーテルが通過しなかった。バルーン先端がシース内に引き込めない状態で、バルーンシャフトを回転させながらガイドワイヤー、シースを一塊として抜去することにより回収することができた。ステントの初回拡張から回収までに要した時間は 22 分で、回収時に SpO₂ が 74% から 52% に低下したが、投与酸素の増量で回復した。ステント留置後呼吸障害は改善し、SpO₂ 90% へ上昇した。治療後数時間で胸部 X 線の肺うっ血所見が改善した (Fig. 1B)。しかし、その後もステントにウエストが残存し呼吸障害および肺うっ血が増悪したため、生後 2 日にステントのウエストに対して超高耐圧のバルーンカテーテル Yoroi® (Kaneka 社、東京) 径 5mm 長さ 20mm を使用して再拡張した。効果が不十分であったため生後 10 日に径 6mm 長さ 20mm の Yoroi® で再拡張しステントのウエストは拡張し効果を得た。生後 3 か月に待機的に総肺静脈還流異常修復術を行った後に、生後 6 か月に両側両方向性 Glenn 手術を行った。現在 Fontan 術を待機中である。

症例 2

女児。在胎 39 週 4 日、出生体重 2,882g, Apgar score 1 分後 8 点、5 分後 8 点で近医産科において出生した。生直後チアノーゼのため出生当日に当院へ搬送となった。胎児診断はなかった。心拍数 130 回/分、呼吸数 60 回/分、血圧 73/31 mmHg (上下肢差なし)、SpO₂ 82% (室内気)。四肢、体幹チアノーゼがあり、肋骨弓下に陥没呼吸を認めた。呼吸音に異常はなかった。心音は II 音が単一亢進し、心尖部で奔馬調律を聴取した。胸骨右縁第 2 肋間に Levine II/VI 度の静脈こま音を聴取した。肝臓を右季肋下 2 横指触知した。胸部 X 線検査で心胸郭比 50%、両側の肺うっ血を認めた (Fig. 4A)。経胸壁心臓超音波検査では、僧帽弁および大動脈弁は閉鎖し左室は痕跡的であった。上行大動脈および大動脈弓は低形成であった。この時点は共通肺静脈腔を左房と誤認し、卵円孔閉鎖を伴う左心低形成症候群と診断した。

緊急経皮的心房間バルーン裂開術 (BAS) の適応と判断し、出生当時に BAS を試みたがこの際の肺動脈造影で初めて上心臓型総肺静脈還流異常症 (Darling 分類 Ib 型) と診断した。垂直静脈が上大静脈へ還流する直前で狭窄と圧較差 (平均圧較差 21 mmHg) があった。肺静脈狭窄部位に対してステントを留置する方針としたが、左大腿静脈からのアプローチでは困

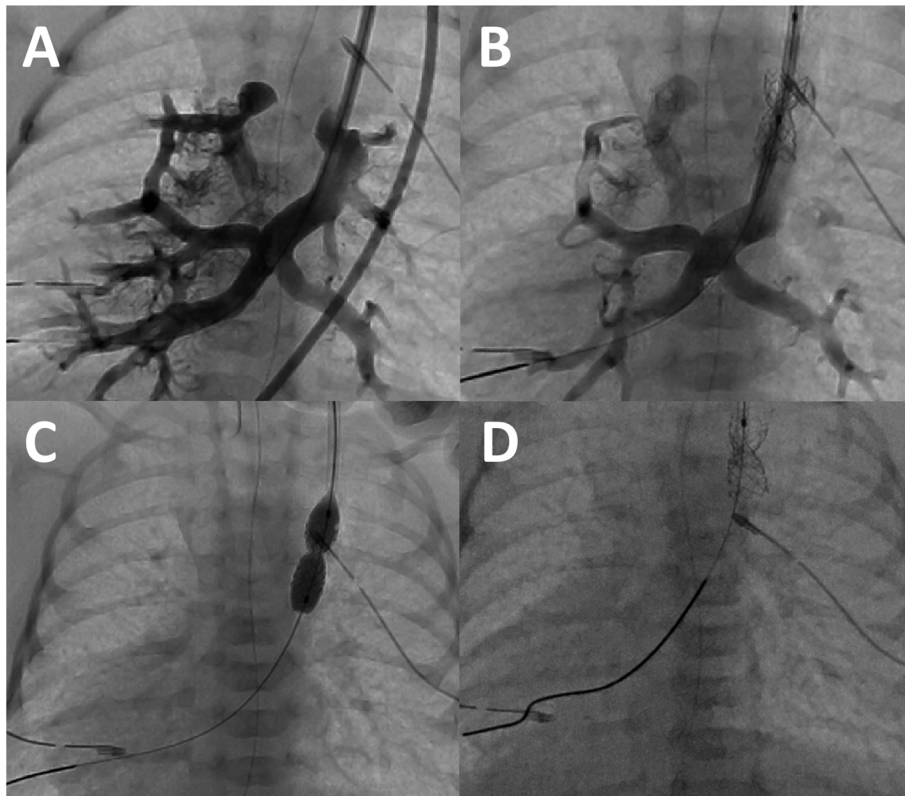


Fig. 3 Cine angiograms during stenting in the vertical vein of Case 1 are shown

A pulmonary venogram shows that the vertical vein drained into the left superior caval vein (A). Balloon was inflated and a stent waist remained (B). Subsequently the balloon was re-inflated (C), but entrapped in the stent (D). Consequently, the balloon was retrieved and pulmonary venous flow was established.

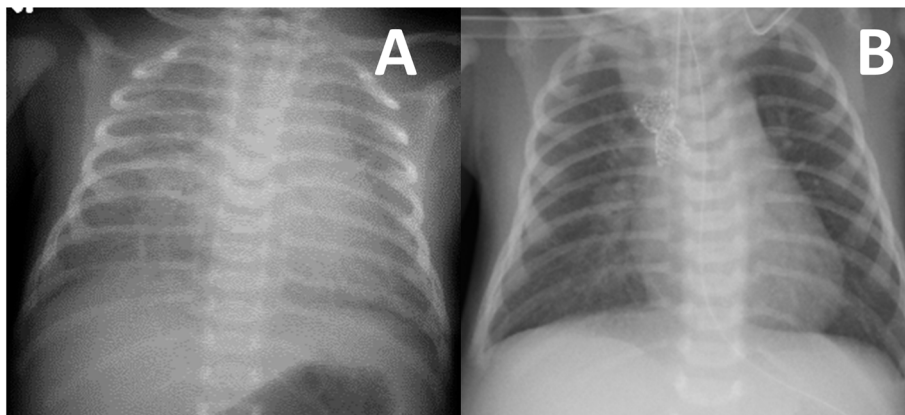


Fig. 4 Chest X-rays before (A) and after (B) stenting of Case 2 are shown. Pulmonary congestion was improved after stenting in the vertical vein

難であったため一旦治療を断念し、翌日（生後1日目）に右内頸静脈からのアプローチで垂直静脈ステント留置を行った。10cm長の6Frシース（メディキット社，東京）を0.035インチガイドワイヤー（ラジフォーカスハーフスティフワイヤー®テルモ社，東京）を用いて狭窄した垂直静脈へ挿入した。垂直静脈

造影で狭窄部径3.5mm，reference径7.5mmであった。Express LD®ステント（Boston scientific社，米国）径8mm長さ17mmを挿入し，繰り返しの造影で位置を確認後，加圧（12気圧）し留置した。ステント拡張後のステント中央にウエストが残存した。回収のためバルーンをシース内へ引き込もうと試みた

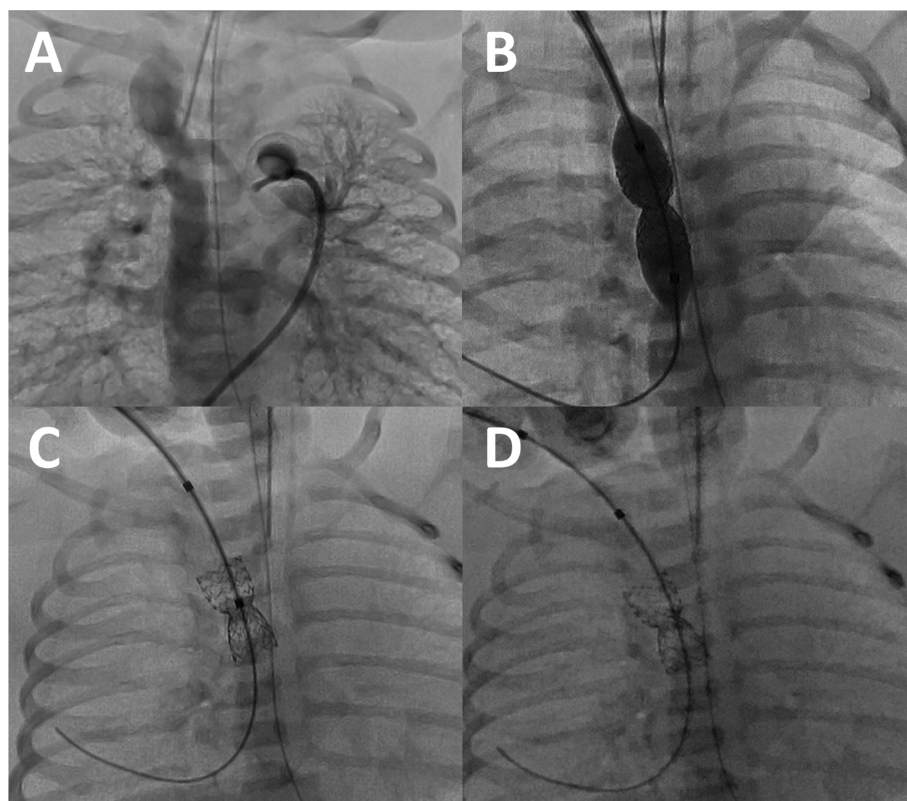


Fig. 5 Cine angiograms during stenting in the vertical vein of Case 2 are shown

A levophase image of pulmonary arteriogram shows that the vertical vein drained into the superior caval vein (A). Balloon was inflated (B) but entrapped in the stent (C). After the retrieval of the balloon (D), the stent was successfully implanted.

が引き込めず、ステント内部でエンタラップされた (Fig. 5)。バルーンに十分な陰圧をかけた状態で引いたり、デフレーションとインフレーションを繰り返したが抜去できなかった。バルーンカテーテルを 0.035 インチガイドワイヤーと一塊として捻りながら抜去・回収することができた。ステントの拡張から回収までに要した時間は 11 分で、拡張時に SpO₂ は 73% に低下したが投与酸素量を増量して対処し拡張終了後すみやかに回復した。治療後、胸部 X 線の肺うっ血所見も改善した (Fig. 4B)。その後もステントのウエストが残存し再度肺うっ血を認めたため、生後 2 か月に Sterling® (Boston scientific 社, 米国) 径 7mm 長さ 20mm を使用して再拡張したがウエストは残存した。生後 9 か月に Norwood 手術 (右 Blalock-Taussig 短絡), 総肺静脈還流異常修復術を行った。しかし術後性肺静脈狭窄を繰り返す, 治療に難渋している。

考 察

今回、垂直静脈狭窄に対する経皮的ステント留置中

にバルーンエンタラップメントを生じた 2 例を経験した。いずれの症例も最終的にはバルーン抜去することが可能であったものの、垂直静脈ステント留置時の重要な合併症として認識する必要がある。

垂直静脈狭窄を合併した総肺静脈還流異常症, 特に無脾症に合併する単心室血行動態の症例においては, 新生児早期の外科的治療介入の予後は不良であるため, 近年, 垂直静脈ステント留置が選択される^{2,3)}。1.4kg の低出生体重児における治療経験も報告され⁷⁾, 垂直静脈狭窄を伴う総肺静脈還流異常症, 単心室の新生児早期外科手術回避のための姑息的垂直静脈ステント留置は有効であると考えられる。

先天性心疾患においてステント留置術は動脈・静脈・動脈管等の様々な病変に対して行われるためその合併症も多様である⁸⁻¹¹⁾。Hascoët らは, 先天性心疾患に対するステント留置 207 手技中 7.7% に合併症を経験し, その内訳は留置後ステント移動 3 例が最も多く, その他, ステント内血栓形成, 脳梗塞, 肺出血, 血胸, 肺動脈解離, 後腹膜出血, 鼠径部血腫形成, 大腿動静脈瘻, 心室性不整脈, 菌血症であったと報告し

ている¹²⁾。JPIC データベースからの肺動脈へのステント留置中の合併症は、ステント留置時のステント屈曲が7例、ステントの不適切部位への留置（留置時のステントの移動、バルーンからのスリップ）が23例と最多であった。バルーンカテーテルに関連した合併症としてバルーンカテーテルの破裂17例が報告されているが、バルーンエントラップメント（抜去困難）は1例のみと少なかった¹³⁾。しかし、成人領域においてエントラップメントは、血流障害や血栓塞栓など重篤な合併症を生じたり、人工心肺を使用した緊急的外科治療を要した症例が報告されており^{14,15)}、先天性心疾患においても憂慮すべき合併症の一つとして認識すべきである。

バルーンエントラップメントは、成人における急性冠症候群に対する経皮的冠動脈形成術において0.4～1%に合併すると報告されている^{4,5)}。ステント内にバルーンカテーテルがエントラップされる要因として、①最大加圧（rated pressure）以上の加圧による病変部位拡張、②拡張後の不十分なバルーンデフレーション、③固く長いステントの使用、④支持力の弱いガイドワイヤーの使用、⑤ガイディングカテーテルやロングシースによるサポートがない状態での手技、⑥石灰化が強くウエストが残存する病変への治療、等が挙げられる⁵⁾。我々が経験した2症例において、垂直静脈狭窄は硬化病変でステントにウエストが残存した。症例1は再拡張に超高耐圧バルーンカテーテルを使用しウエストの拡張が得られたが、再拡張に高耐圧バルーンカテーテルを使用した症例2ではウエストが残存した。上心臓型総肺静脈還流異常では垂直静脈狭窄病変は肺動脈や主気管支などの周囲組織から圧迫されて狭窄をきたすことが報告されているが^{16,17)}、狭窄部血管周囲組織のfibrosisが狭窄に関与している報告もある⁶⁾。2症例ともに心臓造影CT検査では周囲組織からの明確な圧迫はなくdiscreteな狭窄で、狭窄の原因として後者が考えられた。また症例1においてはステント留置後の後拡張時にマウントされているバルーンを再使用したことや、2症例ともオープンセル構造に近いセミオープンセル構造を有するExpress（Boston scientific）を使用していたことが反省される点であった。ステントのウエストが残存した際にはセルの鋸歯状円柱が内腔に突出しバルーンカテーテルがエントラップされやすくなった可能性が考えられた。Kilgoreらは⁶⁾、ステント留置後の後拡張時に22気圧で拡張したがウエストが残存した例を報告した。バルーンカテーテルのエントラップメントはなく終えているが、その際クローズドセル構造のステントの使用

や、後拡張時には新しいバルーンカテーテルに入れ替えて拡張を行っていた。このことから、我々の2症例でも後拡張時のバルーンカテーテルの入れ替えや、クローズドセル構造を有するステントを使用するなど工夫が必要であった。

ステント留置術における基本的操作として、バルーン回収時にはシースまたはガイディングカテーテルをステント内に送り込みながらバルーンを回収しなければならないが、それでも抜去困難となった場合の回収のための工夫・解決策として、①デフレーションとインフレーションを繰り返しながらの抜去（Ing法）、②押したり引いたり、あるいは捻りながら抜去、③バルーン内の造影剤を生理食塩水で希釈し急速にデフレーションし抜去、④ガイディングカテーテルをエントラップしたバルーンの位置まで送り込み、ガイドワイヤーでバルーンを穿通させてガイディングカテーテルに回収等が挙げられる^{4,5)}。今回の2症例ともに、①と②の方法で抜去できたもののかなりの抵抗を感じる手技であった。

垂直静脈狭窄を伴う総肺静脈還流異常症および単心室症例において、新生児早期の垂直静脈ステント留置術は今後増加してくると思われる。治療の有効性は確かなものであるが安全な治療を行うためにもバルーンエントラップメントは重要な合併症の一つと認識し、治療前に使用するステントのセル構造やシース（ガイディングカテーテル）操作、ガイドワイヤーや後拡張時のバルーンの種類などへの熟慮が必要である。また、バルーンエントラップメントを生じた際には当該症例と同様に酸素化不良など全身状態の悪化が予測されるため、回収時全身状態への十分な配慮が必要である。

利益相反

本論文について、開示すべき利益相反（COI）はない。

著者の貢献度

杉谷雄一郎：論文の構想，データ収集や分析に関与し，論文を執筆した。

宗内 淳：論文の構想，データ収集や分析に関与し，論文執筆を直接指導した。

岩屋悠生，川口直樹，白水優光，岡田清吾，飯田千晶，渡邊まみ江，宮城ちひろ，安東勇介，落合由恵：論文のデータ収集，批判的校閲に関与した。

引用文献

- 1) Hoashi T, Kagisaki K, Oda T, et al: Long-term results of treatments for functional single ventricle associated with extracardiac type total anomalous pulmonary venous connection. *Eur J Cardiothorac Surg* 2013; **43**: 965–970
- 2) Kitano M, Yazaki S, Kagisaki K, et al: Primary palliative stenting against obstructive mixed-type total anomalous pulmonary venous connection associated with right atrial isomerism. *J Interv Cardiol* 2009; **22**: 404–409
- 3) Wong DT, Yoo SJ, Lee KJ: Implantation of drug-eluting stents for relief of obstructed infra-cardiac totally anomalous pulmonary venous connection in isomerism of the right atrial appendages. *Cardiol Young* 2008; **18**: 628–630
- 4) Bostan M, Satiroğlu Ö, Erdoğan T, et al: A rare complication: Undeatable balloon of the stent. *Interv Med Appl Sci* 2013; **5**: 43–45
- 5) Chang WT, Chen JY, Li YH, et al: A two-case series of entrapment of a ruptured balloon in the coronary artery: Avoidable complications and nonsurgical management. *J Formos Med Assoc* 2015; **114**: 1135–1139
- 6) Kilgore A, Lucas V, Collins T, et al: Stent implantation as a stabilization technique in supracardiac total anomalous pulmonary venous connection. *Catheter Cardiovasc Interv* 2006; **68**: 629–631
- 7) Kobayashi D, Forbes TJ, Aggarwal S: Palliative stent placement in vertical vein in a 1.4kg infant with obstructed supracardiac total anomalous pulmonary venous connection. *Catheter Cardiovasc Interv* 2013; **82**: 574–580
- 8) Forbes TJ, Kim DW, Du W, et al: CCISC Investigators: Comparison of surgical, stent, and balloon angioplasty treatment of native coarctation of the aorta: An observational study by the CCISC (Congenital Cardiovascular Interventional Study Consortium). *J Am Coll Cardiol* 2011; **58**: 2664–2674
- 9) Fujii T, Tomita H, Otsuki S, et al: Stenting for pulmonary artery stenosis complicated by univentricular physiology: Subanalysis of JPIC stent survey. *J Cardiol* 2014; **64**: 324–327
- 10) Frazer JR, Ing FF: Stenting of stenotic or occluded iliofemoral veins, superior and inferior vena cavae in children with congenital heart disease: Acute results and intermediate follow up. *Catheter Cardiovasc Interv* 2009; **73**: 181–188
- 11) Glatz AC, Petit CJ, Goldstein BH, et al: Comparison between patent ductus arteriosus stent and modified Blalock–Taussig shunt as palliation for infants with ductal-dependent pulmonary blood flow: Insights from the congenital catheterization research collaborative. *Circulation* 2018; **137**: 589–601
- 12) Hascoët S, Jalal Z, Baruteau A, et al: Stenting in paediatric and adult congenital heart diseases: A French multicentre study in the current era. *Arch Cardiovasc Dis* 2015; **108**: 650–660
- 13) Tomita H, Nakanishi T, Hamaoka K, et al: Stenting in congenital heart disease: Medium- and long-term outcomes from the JPIC stent survey. *Circ J* 2010; **74**: 1676–1683
- 14) Keltai M, Bartek I, Biró V: Guidewire snap causing left main coronary occlusion during coronary angioplasty. *Cathet Cardiovasc Diagn* 1986; **12**: 324–326
- 15) Singh D, Darbari A: Retrieval of trapped and broken guide wire with immediate rescue off-pump coronary bypass surgery. *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2014; **19**: 529–531
- 16) Lo-A-Njoe SM, Blom NA, Bökenkamp R, et al: Stenting of the vertical vein in obstructed total anomalous pulmonary venous return as rescue procedure in a neonate. *Catheter Cardiovasc Interv* 2006; **67**: 668–670
- 17) Kyser JP, Bengur AR, Siwik ES: Preoperative palliation of newborn obstructed total anomalous pulmonary venous connection by endovascular stent placement. *Catheter Cardiovasc Interv* 2006; **67**: 473–476