

■ 症例報告 ■

バルーン肺動脈形成術後にガイドワイヤーが抜去できず断裂した Williams 症候群の小児例

三木 康暢, 田中 敏克, 久保 慎吾

Guidewire entrapment and fracture during balloon pulmonary angioplasty in a pediatric case with Williams syndrome

Yasunobu Miki, Toshikatsu Tanaka, and Shingo Kubo

doi: 10.20599/jcic.9.5

■ 要 約 ■ 症例は Williams 症候群, 大動脈弁上狭窄, 末梢性肺動脈狭窄の 11 か月女児。大動脈弁上拡大術, 冠動脈入口部形成術, 肺動脈形成術を施行したが, 右室圧高値のため体外式膜型人工肺下で手術を終了した。術後 8 日目バルーン肺動脈形成術 (Balloon pulmonary angioplasty; 以下 BPA) を行った。左右肺動脈 5 病変に対して BPA を行った。いずれも 0.014 インチ Aguru™ ガイドワイヤー, 3 mm バルーンを用いた。6 病変目としての右上肺動脈の径 1 mm のびまん性狭窄に対して同システムで BPA を行った。施行後ガイドワイヤーが抜去できず, 引き抜くとアンラベルした。ピッグテイル, スネアカテールを用いたが, アンラベル箇所が切断された。外科的抜去を施行したが全抜去は困難であった。肺動脈のびまん性狭窄病変ではガイドワイヤーの抜去困難が起こりうる。金属疲労のあるガイドワイヤーは断裂の可能性を念頭に置く。

■ Abstract ■ The case involved an 11-month-old female infant with Williams syndrome, supravalvular aortic stenosis, and peripheral pulmonary artery stenosis. She underwent supravalvular aortic enlargement, coronary ostial plasty, and pulmonary arterioplasty. Due to elevated right ventricular pressure, the surgery was completed under extracorporeal membrane oxygenation. Balloon pulmonary angioplasty (BPA) was performed on the 8th day postoperatively for both pulmonary arteries. BPA was performed on five lesions in the left and right pulmonary artery, using a 0.014-inch Aguru™ guidewire and a 3 mm balloon. As the sixth procedure, BPA was performed for diffuse stenotic lesion of the right upper pulmonary artery with a 1 mm diameter using the same guidewire and balloon. After BPA, the guidewire became irretrievable. Attempts to retrieve the guidewire with a pigtail catheter and a snare catheter were unsuccessful. Surgical removal was attempted, but removal was not possible completely. Guidewire entrapment can occur in cases of diffuse stenotic lesions in pulmonary arteries. We need to consider the risk of fracture in guidewires with metal fatigue.

■ Key words ■ guidewire, entrapment, fracture, pulmonary artery, Williams syndrome

はじめに

2018 年の JCIC データベースによると先天性心疾患カテーテル治療 4909 例のうち, 経皮的バルーン血管形成術は 1632 例 (36%) と多く行われている手技である。有害事象の多くは血管損傷であり, デバイス関連の合併症は 3% と稀である¹⁾。デバイスのうち, ガイドワイヤーに関連するものは少ない。ガイドワイヤーの抜去困難は成人の冠動脈病変での報告が多い。今回, 我々は末梢肺動脈での

ガイドワイヤーが抜去できず断裂した例を経験したので報告する。

症 例

在胎 37 週, 体重 2360 g で出生した女児。心雑音のため, 生後 9 か月で紹介医を受診し, 大動脈弁上狭窄, 末梢性肺動脈狭窄症と診断された。心疾患, 顔貌から遺伝子検査で Williams 症候群と診断された。生後 10 か月時に心臓カテーテル検査が行われ, 中心静脈圧 4 mmHg, 右

兵庫県立こども病院 循環器内科

Department of Cardiology, Kobe Children's Hospital, Hyogo, Japan

Received June 18, 2024; Accepted August 14, 2024

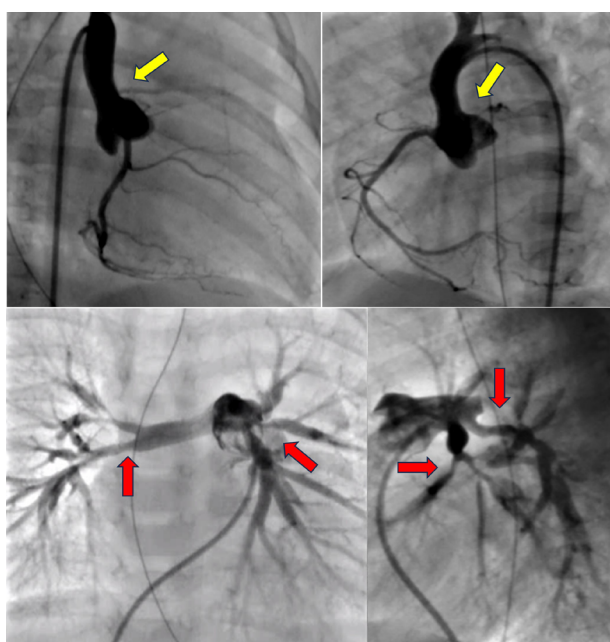


Fig. 1 Preoperative angiography

Angiography demonstrates supralvalvular aortic stenosis, left coronary ostium stenosis, and diffuse stenosis of both pulmonary arteries.

Yellow arrows indicate positions of aortic enlargement and left coronary ostial plasty.

Red arrows indicate positions of pulmonary artery reconstruction.

室圧117/e7mmHg, 左室圧111/e8mmHg, 上行大動脈圧109/46mmHg, 下行大動脈圧82/38mmHgであった。大動脈造影では大動脈弁上狭窄, 左冠動脈入口部狭窄を認めた。肺動脈造影では両側肺動脈にびまん性末梢性肺動脈狭窄を認めた (Fig. 1)。肺動脈圧測定中に血圧低下, 徐脈を認め, 蘇生が行われた。手術目的に11か月時に当院に転院した。11か月時に大動脈弁上拡大術, 左冠動脈入口部形成術, 左右肺動脈形成術を行った。右室圧高値, 右室収縮不全のため, 体外式膜型人工肺下での手術終了となった。体外式膜型人工肺が離脱困難のため, 術後8日目に左右肺動脈に対してBPAを企図した。身長65.5cm, 体重6.3kgであった。右肺動脈2病変 (Fig. 2a, 2c), 左肺動脈3病変 (Fig. 2b, 2d) に対してBPAを行った。いずれも0.014インチAguru™ (Boston Scientific, Natick, MA) をガイドワイヤーとして, SapphireII™ 3mm (OrbusNeich Medical, Ft. Lauderdale, Florida) のバルーンを用いた。BPA後の主肺動脈圧は93/10mmHgであった。その後, 6病変目として右上肺動脈の径1mmのびまん性狭窄に対して, BPAを行った (Fig. 3a, 3b, 3c)。その際のガイドワイヤーの先端は変形していた。バルーン後にガイドワイヤーが抜去困難となった。4Fr Judkins Right型カテーテルを押し付けて抜去を試みたが, ワイヤーがアンラベルした (Fig. 4a)。ピグテイルカテーテルを用いたが, アンラベルした箇所が切断され, 先端は肺動脈に残存した (Fig. 4b)。次にGoose Neck™ Snare (Medtronic, Minneapolis, Minnesota) を可能

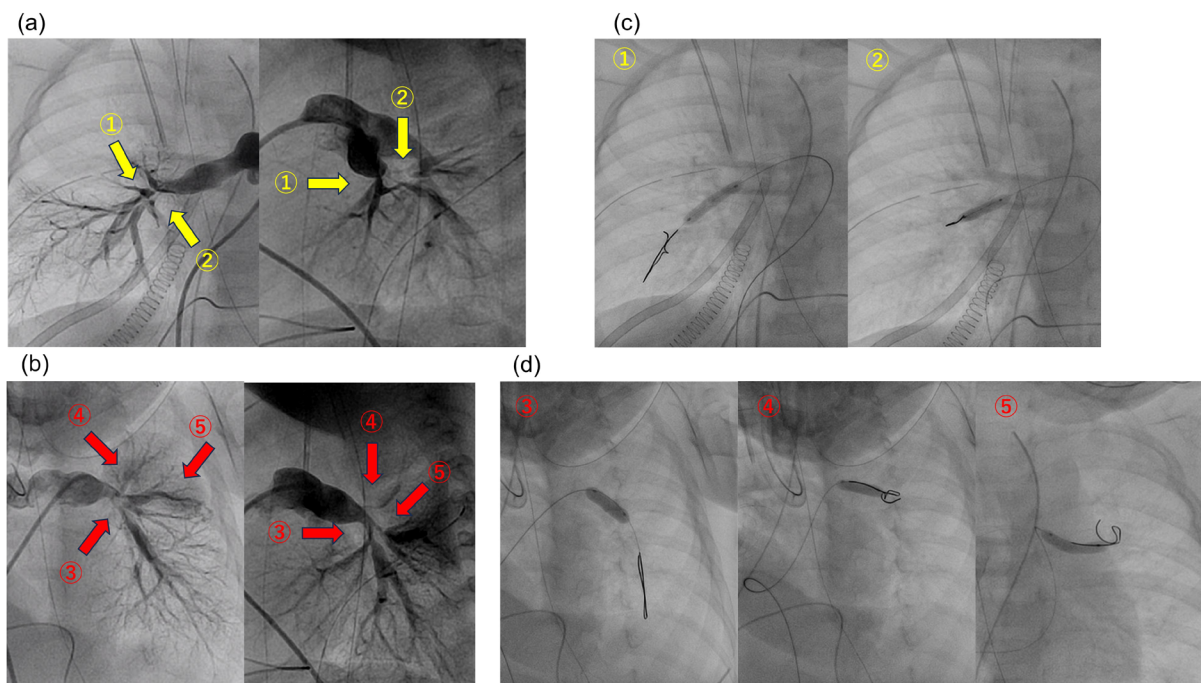


Fig. 2 Postoperative angiography and BPA

(a), (b) Angiography reveals that pulmonary artery stenosis persists. (c), (d) BPA was performed on two lesions in the right pulmonary artery (①, ②) (c), and three lesions in the left pulmonary artery (④, ⑤) (d).

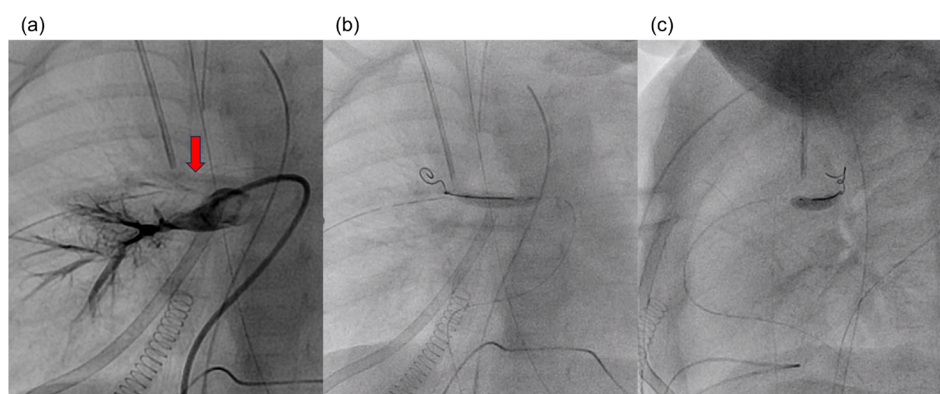


Fig. 3 BPA at the sixth procedure

(a) Red arrow indicates diffuse stenosis of the right upper pulmonary artery. (b), (c) Angiography shows BPA for a diffuse stenotic lesion in right pulmonary artery in the anteroposterior view (b), and lateral view (c).

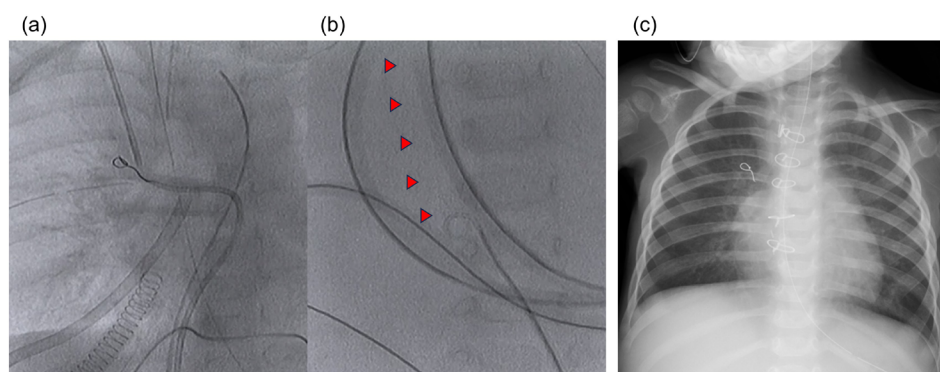


Fig. 4 Attempts to remove the entrapped guidewire

(a) A catheter was wedged in the right upper pulmonary artery. (b) A pigtail catheter was used to retrieve the unlabeled guidewire. Red arrows indicate the unlabeled guidewire. (c) Postoperative chest X-ray shows the retained tip of guidewire.

な限り遠位に進めたが、アンラベルした箇所のみが切断された。残存ガイドワイヤーを末梢側肺動脈へ押し込もうとしたが、成功しなかった。外科的にガイドワイヤーを抜去することに加え、6病変目のBPAでも右室圧の減圧は十分ではないと考えられたため、5mmの心房中隔欠損作成を同時に行う方針とした。右上葉区域枝を切開し、手動的に抜去を試みるも抜去は困難であり、先端を残して可及的末梢で切断した (Fig. 4c)。術後2日目には体外式膜型人工肺を離脱し、術後11日目にカテコラミンを中止した。術後15日目には抜管した。退院前には室内気でSpO₂ 95%以上であった。術後1年のカテーテル検査では右室駆出率60%、右室圧90/e7mmHgと高値が続いており、BPAを定期的に繰り返している。術後1年6か月時点で残存ワイヤーの移動はなく、感染の発生はない。

考 察

本症例では、複数回のBPA後、末梢肺動脈狭窄病変に留置したガイドワイヤーを抜去できず、金属疲労の結果、断裂につながったと考えられた。内科的にバイルアウトできず、外科的にも回収できなかったため先端は肺動脈内に

残存した。

2018年のJCICデータベースによると、経皮的肺動脈血管形成術の有害事象発生率は6.2%、死亡率0.1%であると報告されている。合併症の多くは血管損傷であり、デバイス関連の合併症は3%である¹⁾。調べる限り、肺動脈においてカテーテルの抜去困難の報告はあるが、ガイドワイヤーの抜去困難の報告は認められなかった²⁾。冠動脈でのガイドワイヤー抜去困難は報告されており、Reviewによると発生率は0.1-0.2%である^{3,4)}。また抜去困難に対して外科的介入を要するのは43%と報告されている⁵⁾。冠動脈では、慢性完全閉塞病変や分岐部病変、蛇行した病変、石灰化の強い病変は断裂や抜去困難のリスクとされている⁶⁾。本症例でも蛇行した病変と同様、びまん性の狭窄病変が抜去困難のリスク因子であったと考えられた。また複数回使用によるガイドワイヤーの変形が抜去困難の一因であった可能性もある。

ガイドワイヤーの断裂を避けるため、過大な力をかけずに抜去を試みるのが推奨されている。本症例では過大な力は避けたが断裂に至っており、金属疲労が断裂の一因であった可能性がある⁷⁾。複数の病変に対する治療では同一

のワイヤーを使用することがあるが、明確な基準はないものの、先端の変形が強いなど金属疲労を疑う場合には新たなガイドワイヤーへ積極的に変更する必要があると考えられた。

肺動脈病変でのガイドワイヤー抜去不能時のベイルアウトについては、冠動脈病変での方法が参考になる。冠動脈病変では、断裂を避けるため過大な力をかけた抜去を避ける、血管拡張剤の使用、抜去困難箇所へのバルーンを試みる、スネアカテーテルを用いる、double or triple-wire technique, knuckle-twister techniqueなどがあげられている^{8,9)}。冠動脈病変での内科的ベイルアウトとして、スネアカテーテルが32%と最も多く、バルーン拡張かつカテーテルのウェッジが21%、double or triple-wire techniqueが11%と多く行われているとの報告がある⁵⁾。本症例ではスネアカテーテル、ピッグテイルでの抜去を試みたが、不可能であった。外科的な用手牽引でもガイドワイヤーが残存したことから、内科的ベイルアウトは困難であったと考えられるが、多くのベイルアウト方法を知っておくことは重要である。

肺動脈においてもびまん性狭窄病変ではガイドワイヤーの抜去困難が起こりうる。また金属疲労のあるガイドワイヤーは断裂の可能性があることを認識したうえでバルーン血管形成に臨む必要がある。複数の病変に対する治療では同一のワイヤーの使用は制限し、新たなガイドワイヤーに積極的に変更を考慮する。

引用文献

- 1) 金 成海, 松井彦郎, 犬塚 亮, ほか: 2018年における先天性心疾患, 川崎病および頻拍性不整脈に対するカテーテルインターベンション・アブレーション全国集計: 日本先天性心疾患インターベンション学会レジストリー (JCIC-Registry) (旧日本Pediatric Interventional Cardiology学会データベース (JPIC-DB)) からの年次報告. J JCIC 2019; 4: 24–38
- 2) Gonzalez LS, Coghlan C, Alsatli RA, et al: The entrapped pulmonary artery catheter. J Cardiothorac Vasc Anesth 2022; 36: 4198–4207
- 3) Hartzler GO, Rutherford BD, McConahay DR: Retained percutaneous transluminal coronary angioplasty equipment components and their management. Am J Cardiol 1987; 60: 1260–1264
- 4) Steffenino G, Meier B, Finci L, et al: Acute complications of elective coronary angioplasty: A review of 500 consecutive procedures. Heart 1988; 59: 151–158
- 5) Al-Moghairi AM, Al-Amri HS: Management of retained intervention guide-wire: A literature review. Curr Cardiol Rev 2013; 9: 260–266
- 6) Danek BA, Karatasakis A, Brilakis ES: Consequences and treatment of guidewire entrapment and fracture during percutaneous coronary intervention. Cardiovasc Revasc Med 2016; 17: 129–133
- 7) 唐原 悟, 清水 稔. 冠動脈インターベンション時に断裂・遺残したガイドワイヤーが亜急性血栓性閉塞の原因と考えられた一症例. Dokkyo Journal of Medical Sciences 2008; 35: 65–70
- 8) Leibundgut G, Achim A, Krivoshei L: Safe and predictable transcatheter removal of broken coronary guidewires: the ‘knuckle-twister’ technique: A case series report. Eur Heart J Case Rep 2023; 7: yta311
- 9) Sharma T, Pfeffer B, Kwon CC, et al: Management of guidewire entrapment and fracture during percutaneous coronary intervention: When all bailout techniques fail! Tex Heart Inst J 2023; 50: e217685

- 1) 金 成海, 松井彦郎, 犬塚 亮, ほか: 2018年における先天性心疾患, 川崎病および頻拍性不整脈に対するカテー