症例報告

ランブル疣贅の関与が示唆された再発性脳塞栓症の1例

中澤 祐介¹⁾ 高下 純平^{1)*} 森重 徳継²⁾
加藤 誠也³⁾ 川尻 真和¹⁾ 山田 猛¹⁾

要旨：症例は75歳女性。2015年4月某日左内頸動脈閉塞を発症し血栓溶解療法と機械的血栓回収術により再開通を得た。僧帽弁狭窄症と心房細動を認め、弁膜症性心房細動による脳塞栓症と診断し抗凝固療法を開始した。その後2年間で抗凝固療法中にも関わらず2度の左内頸動脈閉塞を再発した。僧帽弁狭窄症に対する弁置換術を予定したが経食道心エコーで大動脈弁に浮動性構造物を認め、塞栓リスクを疑い僧帽弁と併せて大動脈弁置換術も施行した。病理所見はランブル疣贅であった。術後より脳梗塞は再発していない。ランブル疣贅が合併した脳塞栓症の治療に関してコンセンサスは得られていないが本例では手術介入が再発予防に有用であった可能性が示唆された。

(臨床神経 2022;62:145-151)

Key words：ランブル疣贅，ワルファリンカリウム，経食道心エコー，心臓手術，機械的血栓回収術

はじめに

ランブル疣贅とは心臓弁尖の接合部付近に生じる糸状の構造物であり、これに関連した塞栓症の報告が散見されるが、その病態や脳梗塞リスク、治療方針に関しては不明な点が多い¹⁾。本症例は弁膜症性心房細動に伴う心原性脳塞栓症に対して抗凝固薬による再発予防治療を行ったが、内頸動脈閉塞症を繰り返したため、僧帽弁置換術を予定したところ、術前精査の経食道心エコーで大動脈弁に塞栓リスクを疑わせるような浮動性構造物を認めた。これを併せて摘出するために両弁置換術を行った。摘出した浮動性構造物の病理所見はランブル疣贅であり、脳塞栓症との関与が示唆された。ランブル疣贅に関連した脳梗塞とその治療方針について示唆に富む症例と考えられたため報告する。

症 例

患者：75歳，女性

主訴：失語，右片麻痺，左共同偏視

家族歴：心血管病や脳卒中の家族歴なし。

既往歴：高血圧症。

現病歴：2015年4月某日74歳時に右片麻痺および失語の症状で左内頸動脈閉塞症を発症し，当科にて tissue plasminogen

activator (t-PA) 静注血栓溶解療法と機械的血栓回収術により閉塞動脈の再開通が得られ症状は改善した。心電図で持続性心房細動を認め，また経胸壁心エコーで左房拡大と中等度の僧帽弁狭窄症を認めたことから，弁膜症性心房細動に伴う心原性脳塞栓症と診断し，PT-INR 2.0~3.0 を目標にワルファリンカリウムを開始した。経過中に急性心不全を発症したが，治療により改善しリハビリ転院の後，modified Rankin Scale (mRS) 1 の状態で自宅退院となった。2016年2月某日に同様に右片麻痺および失語の症状で左内頸動脈閉塞症を再発，再度 t-PA 静注血栓溶解療法と機械的血栓回収術を施行し，症状は改善した。入院時の PT-INR は 1.54 であった。経食道心エコー検査を施行したところ，左房内にモヤモヤエコーと左心耳内に血栓を疑う所見を認めた。抗凝固療法を強化する方針とし，PT-INR 2.5~3.0 を目標にワルファリンカリウムの内服を調整し mRS 1 の状態で自宅退院となった。2016年11月某日自宅にて再度失語，右片麻痺，左共同偏視を認め当院救急搬送となった。

来院時現症：身長 146 cm，体重 43 kg，血圧 141/94 mmHg，脈拍 71 回/分，不整，体温 36.2°C。その他一般理学所見に異常を認めなかった。

神経学的所見：来院時は JCS II-30，GCS は E2V3M5 の 10 点，左共同偏視を認めた。四肢挙上の指示動作は可能であったが，自発言語は少なく，運動性失語を認めた。軽度の構音

*Corresponding author: 国立循環器病研究センター脳血管内科 [〒564-8565 大阪府吹田市岸部新町6番1号]

¹⁾ 済生会福岡総合病院脳神経内科

²⁾ 済生会福岡総合病院心臓血管外科

³⁾ 済生会福岡総合病院病理診断科

(Received July 16, 2021; Accepted September 14, 2021; Published online in J-STAGE on January 31, 2022)

doi: 10.5692/clinicalneuroi.cn-001671

Fig. 1 Brain MRI on admission.

Axial diffusion-weighted image shows a hyperintense lesion in the left corona radiata (arrow) (A). MRA shows left internal carotid artery occlusion (arrow) (B).

障害, 中枢性右顔面麻痺, 右上下肢 MMT3/5 の片麻痺を認めた. 感覚障害はなかった. 病的反射は認めなかった. National Institute of Health Stroke Scale (NIHSS) は 13 点であった.

検査所見: 血液検査では WBC 5,000/ μ l, RBC 412 $\times$ 10⁴/ μ l, Hb 12.8 g/dl, Ht 37.2%, Plt 22.3 $\times$ 10⁴/ μ l と正常で, CRP 0.09 mg/dl と炎症反応は認めなかった. PT-INR 1.6, APTT 34.3 秒, D-dimer 0.7 μ g/ml と軽度の上昇を伴い, PT-INR は前述の治療目標以下だった. LDL コレステロール 166 mg/dl と脂質異常症も認め, 随時血糖 134 mg/dl, HbA1c 6.3% であった. BUN 15.9 mg/dl, クレアチニン 0.66 mg/dl と腎機能障害はなかった. NT-pro BNP は 1229 pg/ml と上昇していた. 12 誘導心電図では心房細動を認めた. 胸部 X 線写真では異常所見はなかった. 経胸壁心エコー検査では EF 56% と軽度の心機能低下が疑われた. 左房径は 44 mm と拡大していた. 僧帽弁口面積 1.1 cm², 平均圧較差 7.0 mmHg と中等度の僧帽弁狭窄症を認めた. 大動脈弁の開放制限や逆流は認めなかった. 左房内血栓は確認できなかった.

画像所見: 頭部 MRI では, 左放線冠に拡散強調画像で高信号を呈しており, ASPECTS+W²) は 10/11 点であった (Fig. 1A). MRA では左内頸動脈の描出が不良であった (Fig. 1B).

入院後経過: 神経症候と画像所見より clinical-diffusion mismatch があり機械的血栓回収療法の適応と判断, 発症から 120 分で t-PA 静注血栓溶解療法を開始した. 続いて脳血管造影検査を行い, 左中大脳動脈 M1 閉塞, 左前大脳動脈 A2 閉塞を確認した (Fig. 2A). そのまま機械的血栓回収術へと移行し, 左中大脳動脈 M1 閉塞に対して Stent Retriever (Trevo3*20 mm) を用いて血栓回収を行い赤色血栓を回収し, 左中大脳動脈の再開通が得られた. 最終造影で左 M1 閉塞は再開通が得られたものの左 A2 閉塞が残存し, modified Thrombolysis in Cerebral Infarction Grade 2B で治療を終了し

た (Fig. 2B). 治療後より失語, 左共同偏視は改善したが, 右上下肢麻痺は MMT4/5 と残存し, 24 時間後の NIHSS は 4 点であった. 経食道心エコー検査を再検したところ, 左心耳内に血栓は認めなかったが, 大動脈弁上に線状の可動性の高輝度構造物を認め, 塞栓源の可能性が疑われた (Fig. 3). 鑑別としてランブル疣贅, 乳頭状線維弾性腫 (papillary fibroelastoma, 以下 PFE と略記), 非細菌性血栓性心内膜炎等が考えられたが, ワルファリンカリウムによる抗凝固療法にもかかわらず脳主幹動脈閉塞を 2 度再発しており, 中等度の僧帽弁狭窄症と心房細動があったことから, 僧帽弁置換術と併せて大動脈弁構造物を摘出することとし, 心臓血管外科にて僧帽弁・大動脈弁置換術 (僧帽弁: St. Jude Medical EPIC 生体弁 25 mm, 大動脈弁: Solo Smart ステントレス生体弁 21 mm) および Maze 手術, 左心耳閉鎖術を行った. 術中, 心腔内や左心耳内に血栓は認めなかった. 摘出された大動脈弁に硬化像はめだたなかったが, 無冠尖の閉鎖縁に最大 10 $\times$ 2 mm 大の複数の白色で分枝する糸状構造物を認めた (Fig. 4A). また摘出された僧帽弁は高度に弁葉が肥厚し交連部の癒合と石灰化を伴いリウマチ性弁膜症として矛盾しない所見であった (Fig. 4B). 糸状構造物の組織所見では線維弾性の結合組織の芯と表層を被覆する一層の内皮細胞が確認され, ランブル疣贅と診断した (Fig. 4C, D). 術後経過は良好であり, 術後の経胸壁心エコー検査で僧帽弁口面積 2.8 cm², 平均圧較差 6.0 mmHg, 大動脈弁最大流速 1.8 m/s, 平均圧較差 7.8 mmHg であり, 置換後の両弁の可動性は良好であった. 心房細動は持続していたため, ワルファリンカリウムの内服は継続し, mRS 3 の状態でリハビリ転院となった. 3 度目の脳梗塞から 3 年後 mRS 2 の状態であり, 脳梗塞の再発はなく, 自宅にて生活できている.

Fig. 2 Cerebral angiography on admission.

Pre-treatment left internal carotid angiography shows the middle cerebral artery (MCA) and anterior cerebral artery (ACA) occlusion (arrows) (A). The left MCA is recanalized on the post-treatment (B).

Fig. 3 Transesophageal echocardiography.

The longitudinal view shows mobile hyperechoic linear structures (arrow) on the non-coronary cusp of the aortic valve.

考 察

本症例は弁膜症性心房細動に対するワルファリンカリウムの内服下において脳梗塞の再発を繰り返した。再発予防のために外科的介入も企図しながら精査を行っていたところ、経食道心エコーで大動脈弁に塞栓リスクを疑わせるような線状構造物を認め、摘出した結果、ランブル疣贅であることが判明した。心臓外科手術後も心房細動は持続するものの、脳塞栓症の再発を認めなくなり、ランブル疣贅の脳梗塞への関与が考えられた。

ランブル疣贅は冠動脈³⁾や下肢動脈⁴⁾などの血栓塞栓症との関連が報告されているが、近年、脳塞栓症においても稀な塞栓源になりえると考えられている。ランブル疣贅は弁尖の接合部付近で生じる機械的な心内膜損傷部にフィブリンが沈着し、周囲に内皮細胞が増殖することによって形成される構造物と考えられている⁵⁾。大きさは 10×1 mm程度とする報告が多く、組織学的には線維弾性組織の芯を有し、周囲は単層性内皮細胞で覆われ内部は avascular とされる⁶⁾。ランブル疣贅の成因として長期に及ぶ弁の表面組織の損傷による反応性変化と考えられており、本症例のようなリウマチ性弁膜症で比較的多く認められ、心内血流動態の変化が大きいことが要因として推測されている⁷⁾⁸⁾。ランブル疣贅は病理組織学的にも細菌性ないし非細菌性の疣贅や心内血栓、種々の心臓腫瘍との鑑別が必要であり、特にPFEとの鑑別は難しい。本例では弁の閉鎖縁状に小さい複数個の病変を生じていることからランブル疣贅が示唆され、通常、PFEは弁膜の閉鎖縁より離れた部位や心内の様々な部位にシダ状、ゼラチン様の外観を示す大型の病変を形成するとされている⁹⁾。しかしながら、両者の組織所見は類似しており、一連のスペクトラムの病態とも考えられ¹⁰⁾、これらの発生機序や明確な差異については現時点でも明らかではない。

ランブル疣贅に合併した脳塞栓症の既報告14例を表に示した (Table 1)。既報告では本症例のような主幹動脈閉塞症例は2例のみであった。脳塞栓症の再発例も認めるが、本症例のような主幹動脈閉塞を3度発症した例はなかった。これらのうち維持療法として抗血小板薬が8例、抗凝固薬が3例、弁置換術が5例に行われており、再発例では本症例のよ

Fig. 4 Macroscopic and pathological findings of the surgically removed valves.

A: The macroscopic view of the resected aortic valve shows 3 filiform fronds attached to the non-coronary cusp of the aortic valve (arrows). Bar = 1 cm. B: The macroscopic view of the resected mitral valve shows thickened, calcified leaflets confirmed to be rheumatic heart disease. Bar = 1 cm. C: Histological findings of the filiform frond shows a round core with endothelial cells on the surface. H & E stain, bar = 200 μ m. D: Elastica van Gieson stain of the frond. The frond's core is composed of fibroelastic fibers, a characteristic finding of Lambli's excrescence. Elastica van Gieson stain, bar = 200 μ m.

うに外科的切除術が選択されているケースが散見された。ランブル疣贅が塞栓症をおこす機序として、ランブル疣贅の一部が遊離して塞栓源となることや、ランブル疣贅上に形成されたフィブリン血栓の遊離による塞栓症が考えられている²¹⁾。本症例において血栓回収術で回収された血栓は赤色血栓であったが、血栓の病理組織学的評価は行っていない。本症例の脳塞栓症の成因として、閉塞血管において遊離したランブル疣贅が血管を閉塞させた部位に二次的に形成された赤色血栓²²⁾、あるいはランブル疣贅上に形成されたフィブリン血栓が脳主幹動脈を閉塞させた可能性を考えた。

本症例では1回目の経食道心エコー検査においてランブル疣贅は検出されなかった。3度目の入院時に過去の経食道心エコー所見を後方視的に観察したところ、ランブル疣贅は2度目の入院時から認められており、経食道心エコーによる観察が不十分であった可能性が高い。経食道心エコーによるランブル疣贅の検出感度は68%と報告されており²⁰⁾、注意深く観察する必要がある。

本症例は中等度の僧帽弁狭窄症に伴う心房細動が存在し、塞栓症と急性心不全の既往も認めていたことから僧帽弁置換術の適応があった。しかし、経食道心エコーで大動脈弁に浮

動性構造物を認めたことから塞栓源としての可能性が懸念された。僧帽弁狭窄症に対する外科的治療が再発予防に有効であった可能性が考えられるが確実に脳梗塞の再発を予防する意味でも僧帽弁と同時に今回大動脈弁置換術も行ったことが結果的に脳塞栓症に対して再発予防効果があったものと考えられる。また、本症例はワルファリンカリウム内服中に再発しており、ワルファリンカリウムの怠薬や良好な *time in therapeutic range* (TTR) が得られていなかった可能性は否定できないが、今回怠薬や TTR に関する情報は明らかではなかった。しかし、本患者においては通常の弁膜症性心房細動とは異なる病態であり、ワルファリンカリウムだけの長期的な再発予防は困難であったと思われる。

本例では術後病理検査においてランブル疣贅が示唆されたが、術前よりランブル疣贅が指摘された場合の治療方針については、現在まで明確なコンセンサスは得られていない。Kirkらはランブル疣贅を有する患者では、有しない患者と比較して脳梗塞、transient ischemic attack 発症リスクが4.4倍高くなると報告しており²³⁾、また上記既報告例にもあるようにランブル疣贅に対する弁置換術が施行されているケースも多い。ただし心臓外科手術は侵襲的であるため、適応は慎重に検討

Table 1 Previously reported cases of Lambli's excrescence presenting ischemic stroke.

Authors	Age/sex	Lesion	Management	Recurrence frequency
Nighoghossian N [11] (1995)	31 F	Left MCA region Left basal ganglia	Antiplatelet Surgery	Twice
Voros S [5] (1999)	72 M	N.A.	Antiplatelet	
Aggarwal A [12] (2003)	66 F	Right parietal subcortical region	Anticoagulation Surgery	Twice
Wolf RC [13] (2006)	47 F	Left MCA region	Antiplatelet	
Siles Rubio JR [14] (2006)	42 M	TIA	Antiplatelet	
Aziz F [6] (2007)	61 M	Right thalamus	Surgery	
Kalavakunta JK [15] (2010)	59 F	N.A.	Anticoagulation	
Liu RZ [16] (2012)	53 M	Left hemisphere	Antiplatelet	
Liu RZ [16] (2012)	30 F	Corpus callosum Right temporal-parietal region	Surgery	
Wu TY [17] (2013)	66 F	Left P10	Anticoagulation	
Al-Ansari S [18] (2013)	33 M	Right frontoparietal region Anterior part of the left thalamus	Surgery	
Yacoub HA [19] (2014)	59 M	Left M20	Antiplatelet	
Davogusto G [20] (2015)	68 F	Left centrum semiovale	Antiplatelet	
Chu A [1] (2015)	51 F	Right centrum semiovale	Antiplatelet	
Our case	75 F	Left ICO	Anticoagulation Surgery	Thrice

M = male; F = female; MCA = middle cerebral artery; ICO = internal carotid artery occlusion; M20 = MCA M2 occlusion; P10 = posterior cerebral artery P1 occlusion; N.A. = not assessed; TIA = transient ischemic attack.

する必要がある。山本らはランブル疣贅単独では手術適応としないが、塞栓症を発症し、その他の心臓手術が必要な症例に関しては積極的にランブル疣贅も同時に切除する方針を述べている²⁴⁾。また Ammannaya は症候性のランブル疣贅患者において単回の塞栓症であれば抗血小板薬または抗凝固薬での治療を開始し、内服コントロールが悪い場合や頻回に再発する場合は手術を検討することを推奨している²⁵⁾。以上から本症例において僧帽弁狭窄症に対する弁置換術、Maze 手術、左心耳閉鎖術だけでなく、大動脈弁構造物による塞栓症リスクも考慮し、大動脈弁も置換したことは妥当であったと考える。

なお、本症例における再発性主幹動脈閉塞はいずれも同一血管であった。再発性主幹動脈閉塞に対して機械的血栓回収術を施行した Pirson らの後ろ向き観察研究の報告では 70% において同側血管に主幹動脈閉塞が生じている²⁶⁾。同側の血管に閉塞が生じる要因として、血管解剖や血流の差異により最

も抵抗が少ないところへ塞栓子が向かうと考えられており、本症例においてもランブル疣贅からの塞栓子あるいは血栓が最も抵抗が少ない左内頸動脈を繰り返し閉塞させたのではないかと推察した。

結 語

僧房弁狭窄症に伴う心房細動があり、脳塞栓症を繰り返す中、経食道心エコーで大動脈弁に塞栓リスクを疑わせる浮動性構造物を認めたことから両弁置換術を行った。摘出弁においてランブル疣贅であることが判明し、結果的に脳塞栓症再発予防効果を認め、ランブル疣贅の塞栓源としての関与が示唆された。

薬剤治療抵抗性の脳塞栓症の再発例ではランブル疣贅などの塞栓源を鑑別することは治療方針の決定と予後の点で重要と思われる。ランブル疣贅に伴う脳梗塞の二次予防の治療方

針は確立されていないが、本症例のように内科的治療で抵抗性の場合には外科的治療介入も検討する必要があると考えられた。

※本報告の要旨は、第 225 回日本神経学会九州地方会で発表し、会長推薦演題に選ばれたものにその後の経過を加えて報告した。

※著者全員に本論文に関連し、開示すべき COI 状態にある企業、組織、団体はいずれもありません。

文 献

- 1) Chu A, Aung TT, Sahalon H, et al. Lambli's excrescence associated with cryptogenic stroke: a case report and literature review. *Am J Case Rep* 2015;16:876-881.
- 2) Kawano H, Hirano T, Nakajima M, et al. Modified ASPECTS for DWI including deep white matter lesions predicts subsequent intracranial hemorrhage. *J Neurol* 2012;259:2045-2052.
- 3) Quinson P, Gevigney G, Boucher F, et al. Fibrous aortic valve tumor (Lambli's excrescence) trapped in the right coronary artery. Apropos of a case. *Arch Mal Coeur Vaiss* 1996;89:1419-1423.
- 4) Fitzgerald D, Gaffney P, Dervan P, et al. Giant Lambli's excrescence presenting as a peripheral embolus. *Chest* 1982;81:516-517.
- 5) Voros S, Navien C, Abhash C, et al. Lambli's Excrescences (Valvular Strands). *Echocardiography* 1999;16:399-414.
- 6) Aziz F, Baciewicz FA. Lambli's excrescences: review and recommendations. *Tex Heart Inst J* 2007;34:366-368.
- 7) Riddle JM, Wang CH, Magilligan DJ Jr, et al. Scanning electron microscopy of surgically excised human mitral valves in patients over 45 years of age. *Am J Cardiol* 1989;63:471-477.
- 8) Riddle JM, Magilligan DJ Jr, Stein PD. Surface topography of stenotic aortic valves by scanning electron microscopy. *Circulation* 1980;61:496-502.
- 9) Gowda RM, Khan IA, Nair CK, et al. Cardiac papillary fibroelastoma: a comprehensive analysis of 725 cases. *Am Heart J* 2003;146:404-410.
- 10) Darvishian F, Farmer P. Papillary fibroelastoma of the heart: report of two cases and review of the literature. *Ann Clin Lab Sci* 2001;31:291-296.
- 11) Nighoghossian N, Trouillas P, Perinetti M, et al. Lambli's excrescence: an uncommon cause of cerebral embolism. *Rev Neurol (Paris)* 1995;151:583-585.
- 12) Aggarwal A, Leavitt BJ. Images in clinical medicine. Giant Lambli's excrescences. *N Engl J Med* 2003;349:e24.
- 13) Wolf RC, Spiess J, Huber R. Lambli's excrescence and cerebral ischemic insult. *Nervenarzt* 2006;77:1492-1494.
- 14) Siles Rubio JR, Ruiz de castroviejo del Campo J, Tirado Miranda R, et al. Transient ischemic attack due to Lambli's excrescence. Report of a case and review of the literature. *An Med Interna* 2006;23:181-183.
- 15) Kalavakunta JK, Peddi P, Bantu V, et al. Lambli's excrescences: a rare cause of stroke. *J Heart Valve Dis* 2010;19:669-670.
- 16) Liu RZ, Yu SY, Li Y, et al. Migraine-like headache and ischemic strokes in two patients with Lambli's excrescences. *Chin Med J (Engl)* 2012;125:3346-3348.
- 17) Wu TY, Gerber IL, Roxburgh RH. Thrombo-embolic cerebral infarction secondary to giant Lambli's excrescence. *J Clin Neurosci* 2013;20:1632-1634.
- 18) Al-Ansari S, Hindori V, Riezebos RK, et al. Multiple Lambli's excrescences with subvalvular extension, a rare cause of cryptogenic stroke: treated by port-access cardiac surgery. *BMJ Case Rep* 2013:bcr2013201161.
- 19) Yacoub HA, Walsh AL, Pineda CC. Cardioembolic stroke secondary to Lambli's excrescence on the aortic valve: a case report. *J Vasc Interv Neurol* 2014;7:23-25.
- 20) Davogussto G, Fernando RR, Loghin C. Lambli's excrescence, migrainous headaches, and "tiger stripes": puzzling findings in one patient. *Tex Heart Inst J* 2015;42:70-72.
- 21) Kariyanna PT, Jayarangaiah A, Rednam C, et al. Lambli's excrescences and stroke: a scoping study. *Int J Clin Res Trials* 2018;3:127.
- 22) Marder VJ, Chute DJ, Starkman S, et al. Analysis of thrombi retrieved from cerebral arteries of patients with acute ischemic stroke. *Stroke* 2006;37:2086-2093.
- 23) Roberts JK, Omarali I, Di Tullio MR, et al. Valvular strands and cerebral ischemia. *Stroke* 1997;28:2185-2188.
- 24) 山本暢子, 岡村吉隆, 西村好晴ら. Lambli 疣贅切除例の検討. *日心外会誌* 2012;41:135-138.
- 25) Ammannaya GKK. Lambli's excrescences: current diagnosis and management. *Cardiol Res* 2019;10:207-210.
- 26) Pirson FAV, van Oostenbrugge RJ, van Zwam WH, et al. Repeated endovascular thrombectomy in patients with acute ischemic stroke results from a nationwide multicenter database. *Stroke* 2020;51:526-532.

Abstract**A case of recurrent cerebral embolism associated with Lambl's excrescence**

Yusuke Nakazawa, M.D.¹⁾, Junpei Koge, M.D.¹⁾, Noritsugu Morishige, M.D, Ph.D.²⁾, Seiya Kato, M.D, Ph.D.³⁾,
Masakazu Kawajiri, M.D, Ph.D.¹⁾ and Takeshi Yamada, M.D, Ph.D.¹⁾

¹⁾ Division of Neurology, Saiseikai Fukuoka General Hospital

²⁾ Department of Cardiovascular Surgery, Saiseikai Fukuoka General Hospital

³⁾ Division of Pathology, Saiseikai Fukuoka General Hospital

A 75-year-old female had a history of prior ischemic stroke with aphasia and right hemiplegia. Magnetic resonance angiography showed left internal carotid artery occlusion. She was successfully treated with intravenous recombinant tissue plasminogen activator (IV t-PA) and underwent endovascular thrombectomy (EVT). She was diagnosed with cardioembolic stroke due to the presence of atrial fibrillation and mitral valve stenosis, and warfarin was administered. However, she experienced large vessel occlusion twice within 2 years. Upon further analysis, transesophageal echocardiography revealed a mobile hyperechoic structure on the aortic valve, which was assumed to be an embolic source. Thus, we decided to perform mitral and aortic valve replacement. The excised aortic valve structure was suggested to be an example of Lambl's excrescence, histopathologically. After surgery, the patient had no recurrence for 3 years. Several cases of ischemic stroke associated with Lambl's excrescence have been reported, but definitive guidelines for managing patients with Lambl's excrescence do not currently exist. Surgical intervention for Lambl's excrescence with recurrent ischemic events may be important for preventing further recurrence.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2022;62:145-151)

Key words: Lambl's excrescence, Warfarin, Transesophageal echocardiography, Cardiac surgery,
Mechanical thrombectomy