

血管圧迫のない特発性三叉神経痛

小野田恵介¹⁾ 佐藤 透²⁾ 上利 崇³⁾ 伊達 勲³⁾ 重松秀明¹⁾

Idiopathic Trigeminal Neuralgia without Vascular Compression

Keisuke ONODA¹⁾, Toru SATOH²⁾, Takashi AGARI³⁾, Isao DATE³⁾, Hideaki SHIGEMATSU¹⁾

1) Department of Neurosurgery, Okayama Red Cross General Hospital

2) Department of Neurological surgery, Ryofukai Satoh Neurosurgical Hospital

3) Department of Neurological Surgery, Okayama University Graduate School of Medicine, Dentistry and Pharmaceutical Sciences

Trigeminal neuralgia is usually caused by vascular compression at the root entry zone of the trigeminal nerve. Rarely, it may occur without any causative offending vessels. We report two virgin cases of idiopathic trigeminal neuralgia without vascular compression, but with change in nerve shape (Case 1; 76 year-old female, a typical trigeminal neuralgia referred to the 3rd branch, Case 2; 65 year-old female, a typical trigeminal neuralgia involving the 2nd branch). Preoperative assessment of the neurovascular relationship around the trigeminal nerve was made by 3-D MR cisternogram/angiogram fusion imaging, and no vascular compression but change in nerve shape was depicted. At surgery, no offending vessel was found in contact with the affected trigeminal nerve. Additionally, change in the nerve shape, including hollow formation, adhesion and deformation, was observed along the nerve distal to the midpoint running to the orifice of the Meckel's cave (Case 1) and indentation at the rootlet of the nerve into brainstem (Case 2). After sharp dissection of the thick arachnoid membrane causing change in shape of the affected nerve, shape of the nerve was restored. Results were excellent and fair, respectively. In conclusions, 3-D MR cisternogram/angiogram fusion imaging can depict not only the absence of offending vessel, but also the morphological change of the affected nerve in the unusual cases of trigeminal neuralgia. Surgical restoration of shape in the affected trigeminal nerve can be an effective treatment for the trigeminal neuralgia without vascular compression.

Key Words: trigeminal neuralgia, neurovascular compression, microvascular decompression, magnetic resonance imaging, three-dimensional image

1) 岡山赤十字病院脳神経外科 〒700-8607 岡山市青江 2-1-1

2008.1.31. 受稿

2) 涼風会佐藤脳神経外科

3) 岡山大学脳神経外科

I. はじめに

三叉神経痛は、責任血管による三叉神経の root entry zone の圧迫により発症するとされている。そのため、圧迫責任血管を転位し神経を減圧する微小血管減圧術 (microvascular decompression : MVD) は

根本的かつ効果的治療法であり、良好な長期成績が得られている。しかし、三叉神経痛を呈しているにもかかわらず、術中圧迫責任血管が確認できなかった症例もまれに報告されている^{6, 11)}。

今回われわれは典型的な三叉神経痛を呈し、術前 MRI で圧迫責任血管が指摘されず、三叉神経の高度

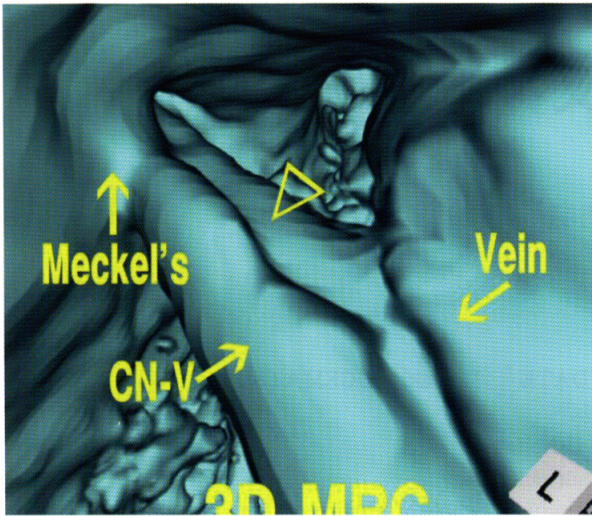


Fig.1 A 76 y.o. female, left trigeminal neuralgia (case 1). Preoperative three-dimensional MR cisternogram/angiogram fusion image. Arrow head; the groove formation of trigeminal nerve. CN-V: trigeminal nerve.

な変形のみを認め、手術にて三叉神経形態を復元し、疼痛の消失・軽減をみた2症例を経験した。本稿では、血管圧迫のない三叉神経痛の発症機序、三叉神経形態の術前診断における3D-MR cisternogram/angiogram fusion imagingの有用性^{8, 13, 14)}などにつき報告する。

II. 症 例

症例1：76歳，女性

主 訴：左顔面痛（左三叉神経第3枝領域）

既往歴，家族歴：特記事項なし

現病歴：来院9ヵ月前より食事にて誘発される左顔面痛（左三叉神経第3枝領域）が出現。近医にてcarbamazepineを処方され疼痛軽減をみていた。しかし、徐々に効果が減弱し、carbamazepineの増量にて高度のふらつきをきたしたため、手術治療目的に当科を紹介された。Barrow Neurological Institute (BNI) pain intensity score⁹⁾の痛み評価はgrade Vであった。左下顎部にtrigger pointを有する典型的な三叉神経

痛と診断した。3-D MR fusion imagingによる術前診断では、圧迫責任血管は認められず、三叉神経の形態異常のみが指摘された。高齢者でもあり、投薬にて経過観察したが、摂食困難となったため、患者・家族の希望があり、インフォームド・コンセントを行い、手術治療とした。

神経放射線学的診断：3D-MR cisternogram/angiogram fusion imagingにより、三叉神経とその周囲の解剖学的構造を3次的に検討した。三叉神経を脳幹部から脳槽、Meckel腔入口部まで詳細に観察したが、三叉神経近傍には接触する動脈静脈などの血管構造物を認められなかった。しかし、手術simulation画像では、三叉神経は脳槽内1/3からMeckel腔入口部にかけて、caudal surfaceが陥凹し、走行形態はcranial sideに引きつるされるように変形し、異常所見と考えられた(Fig.1)。

手 術：右下側臥位で左retrosigmoid approachにて、MVDに準じて術野を展開した。Petrosal veinを剥離し、三叉神経周囲を詳細に探索したが、圧迫責任血管は認められなかった。しかし神経形態はcaudal surfaceが陥凹したhollow状を呈し、petrosal vein周囲のくも膜の肥厚・癒着により変形したものと考えられた(Fig.2A)。これら三叉神経の形態変化は、術前3D-MR cisternogram/angiogram fusion imagingの所見とよく一致していた。くも膜の癒着を慎重に剥離してゆくと、徐々に陥凹・変形が改善した。さらに三叉神経遠位側、Meckel腔入口部から小脳テントに至る部分の肥厚したくも膜を鋭的に剥離すると、神経の走行は直線状となり、神経形態は完全に復元され、神経の可動性・拍動性が確認された(Fig.2B)。

術後経過：顔面痛は術直後より消失し、術後の疼痛評価はGrade Iに改善し、新たな神経症状の出現もなく、術10日後、独歩退院した。術1年6ヵ月後のfollow-up診察でも症状の再発はみえていない。

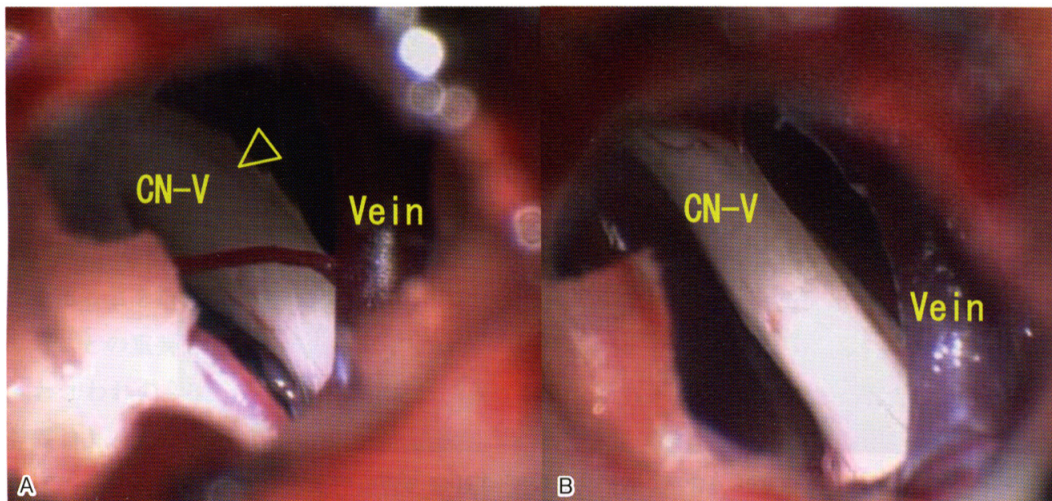


Fig.2 Operative views of case 1. A: pre-treatment. Arrow head showed groove formation of trigeminal nerve. B: post-treatment. The shape of nerve became normal condition after the dissection of thick arachnoid membrane around the nerve.

症例 2：65 歳，女性

主 訴：左顔面痛（三叉神経第 2 枝領域）

現病歴：3 年前より洗顔で誘発される左顔面痛（三叉神経第 2 枝領域）を自覚。近医にて carbamazepine の内服治療を受けていた。3 ヶ月前より疼痛がコントロール困難となり、当科紹介となった。疼痛は、左上顎部に trigger point を有する典型的な三叉神経痛であり、BNI pain intensity score は grade V であった。3-D MR fusion imaging による術前診断では、明らかな圧迫責任血管は認められなかった。投薬にて経過観察したが、効果不十分のため、患者・家族の希望があり、インフォームド・コンセントを行い、手術治療とした。

既往歴，家族歴：特記事項なし。

神経放射線学的診断：術前診断に 3D-MR cisternogram/angiogram fusion imaging を実施し，三叉神経の走行形態を詳細に観察した。三叉神経に接触する動脈静脈などの血管構造物は認められなかったが，三叉神経脳幹入口部で，神経の陥凹変形が認められた（Fig.3）。

手 術：右下側臥位にて左 retrosigmoid approach による手術を施行した。脳幹部から Meckel 腔に到る

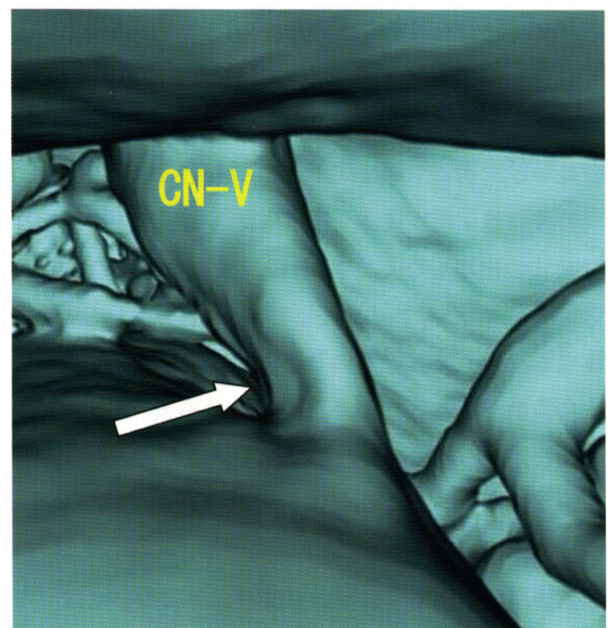


Fig.3 A 65 y.o. female, left trigeminal neuralgia (case 2) . Preoperative three-dimensional MR cisternogram/angiogram fusion image. Arrow; the indentation of the root entry zone of trigeminal nerve. CN-V: trigeminal nerve.

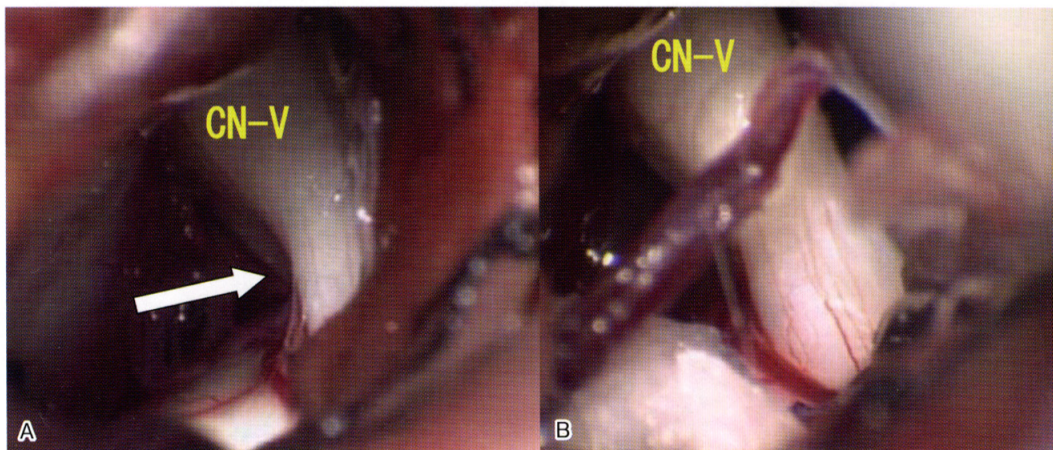


Fig.4 Operative views of case 2. A: pre-treatment. Arrow showed the indentation of the root entry zone of trigeminal nerve. B: post-treatment. The shape of nerve became normal condition after the dissection of thick arachnoid membrane around the nerve.

三叉神経の全走行を観察し、神経周囲を詳細に探索したが、圧迫責任血管は認められなかった。しかし脳幹部近傍で神経形態は限局的に陥凹し、神経周囲くも膜の肥厚・癒着によるものと考えられた (Fig.4A)。これら三叉神経の形態変化は、術前 3D-MR cisternogram/angiogram fusion imaging の所見とよく一致していた。脳幹部から神経入口部にかけてのくも膜の癒着を慎重に剥離すると、神経形態はほぼ完全に復元された (Fig.4B)。

術後経過：術直後より顔面痛は消失した。新たな神経症状の出現もなく術 10 日後、独歩退院した。外来 follow up 中、術 1 ヶ月後より、新たに第 3 枝領域に疼痛が出現した。食事が trigger であったが、誘因なく持続的な痛みとなることもあり、carbamazepine 内服とした。疼痛の術後評価は grade III であった。

Ⅲ. 考 察

血管圧迫の認められない三叉神経痛については、これまで稀に報告されている。Rath ら⁹⁾ は、三叉神経痛手術 135 例のうち 7 例 (5.2%) で圧迫責任血管が認められず、Ishikawa ら⁴⁾ は、再発例を除く初回手

術 48 例の中 5 例 (10.4%) で圧迫責任血管が認められなかったと報告している。われわれの最近 3 年間の経験では、再発例を除いた 45 例中 2 例 (4.4%) で圧迫責任血管が認められなかった。

圧迫責任血管を認めなかった三叉神経痛の術中所見として、Ishikawa ら⁴⁾ は、全例 (5 例) において三叉神経と周囲組織との癒着が認められ、癒着を剥離し、神経を生理的形態に戻すことで、4 例 (80%) で疼痛の軽減が得られたと報告している。圧迫責任血管のない三叉神経痛の発症機序としては、神経周囲の肥厚したくも膜により神経根が可動制限をきたし、拍動する脳幹と神経との間にずり応力が発生するためと考察している。

Grigoyan ら³⁾ は後頭蓋窩の腫瘍摘出後に対側三叉神経痛を生じた 2 例を報告している。三叉神経痛に対する追加手術の所見では血管圧迫を認めず三叉神経の変形のみを認めており、発症機序として腫瘍摘出に伴う脳幹の位置の変化による対側三叉神経への形態的変化を指摘し、血管圧迫のみが機序とならないことを強調している。

Shindou 等¹¹⁾は、手術 579 例の 105 例 (18.2%) に、局所的に肥厚したくも膜と神経との癒着を観察している。特に小脳テントや脳槽内三叉神経遠位部すなわち Meckel 腔近傍で、くも膜と神経との癒着が認められたと報告している。Kondo⁶⁾は血管圧迫のない三叉神経痛例について、神経周囲のくも膜の癒着が発症原因になることを指摘し、これを剥離し、神経の軸を改善することの重要性を強調している。

われわれの 2 例においても、小脳テント、Meckel 腔側および脳幹神経入口部近傍でくも膜の肥厚・癒着を認めた。脳槽内での三叉神経走行の全長を十分確認し、神経と癒着したクモ膜を鋭的に切開することで、神経の拍動性が得られた。神経の走行形態を復元することで、2 例とも疼痛の改善 (excellent, fair) が認められた。

これらの結果から、三叉神経痛の発症機序としては、圧迫責任血管による神経の圧迫以外に、くも膜と神経との癒着による神経形態の変形、神経の可動性・拍動性の制限が原因に成り得ることが示唆された。

圧迫責任血管を有する三叉神経痛に対する MVD は、gold standard として確立している^{5, 7, 12)}。一方、術前の画像診断で圧迫責任血管が認められない症例に対しては、手術に踏み切るか否かの判断に困難を伴う。投薬等の保存的治療で様子を見てゆくも、症状増悪の場合にはどうするか、神経症状を根拠にインフォームド・コンセントを得て手術に踏み切るか、臨床の場で悩むこともまれではない。画像診断で、神経と血管との接触の有無、およびその程度、さらには、三叉神経の形態変化の有無などを詳細にとらえることができれば、有用な判断根拠のひとつとなるものと考えられる。

三叉神経痛の画像診断について、Brisman 等²⁾は、ガンマナイフ治療前に MRI-CISS を実施し、圧迫責任血管は、181 例中 107 例 (59%) に認められたと報告している。Anderson 等¹⁾は、MVD 術前 MRI-SPGR

で 48 例中 42 例 (88%) に圧迫責任血管を認め、術中所見として 34 例 (71%) に血管圧迫を確認している。

われわれは、2005 年から 3D-MRC/MRA fusion imaging を独自に開発し、三叉神経痛や片側顔面けいれんなど神経血管圧迫症候群の術前・術後診断に応用し、神経血管構築の解剖学的関係を 3 次元的に評価してきた^{8, 13, 14)}。その結果、三叉神経痛の自験 40 例中 37 例 (93%) に圧迫責任血管を認め、術中所見では 37 例全例 (100%) で同等の血管圧迫の所見が確認された。さらに、今回提示した圧迫血管のない三叉神経痛では、三叉神経の形態変化を術前にとらえることができた。3D-MRC/MRA fusion imaging では、脳幹部から Meckel 腔に至るまで、三叉神経の全走行形態を立体的に表示することが可能であった。そのため、典型的三叉神経痛で、圧迫責任血管の明らかでない三叉神経痛例に対する手術の decision-making において、3D-MRC/MRA fusion imaging は有用な術前情報を提供するものと考えられた。

IV. おわりに

- 1) 血管圧迫のない三叉神経痛の 2 例に対して、術前画像で三叉神経形態の変形を認め、手術治療を行い、神経形態を復元することで、疼痛の消失・軽減を得た。
- 2) 典型的な三叉神経痛症状を呈し、圧迫責任血管のはっきりしない三叉神経痛症例においては、神経の形態変化が発症原因になる場合があると考えられた。
- 3) 3D-MRC/MRA fusion imaging による術前画像診断で、三叉神経形態の変形が確認された場合には、神経形態の復元を目的とした手術治療を検討してもよいものと考えられた。

文 献

- 1) Anderson VC, Berryhill PC, Sandquest MA: High-resolution three-dimensional magnetic resonance angiography and three-dimensional spoiled gradient-recalled imaging in the evaluation of neurovascular compression in patients with trigeminal neuralgia: a double-blind pilot study. *Neurosurgery* 58: 666-673, 2006
- 2) Brisman R, Khandji AG, Mooij RB: Trigeminal nerve-blood vessel relationship as revealed by high-resolution magnetic resonance imaging and its effect on pain relief after gamma knife radiosurgery for trigeminal neuralgia. *Neurosurgery* 50: 1261-1267, 2002
- 3) Grigoryan YA, Onopchenko CV: Persistent trigeminal neuralgia after removal of contralateral posterior cranial fossa tumor. Report of two cases. *Surgical Neurology* 52: 56-61, 1999
- 4) Ishikawa M, Nishi S, Aoki T: Operative findings in cases of trigeminal neuralgia without vascular compression: Proposal of a different mechanism. *J Clin Neurosci* 9: 200-204, 2002
- 5) Jannetta PJ: Outcome after microvascular decompression for typical trigeminal neuralgia, hemifacial spasm, tinnitus, disabling positional vertigo, and glossopharyngeal neuralgia (honored guest lecture) . *Clin Neurosurg* 44: 331-383, 1997
- 6) Kondo A: Follow-up results of microvascular decompression in trigeminal neuralgia and hemifacial spasm. *Neurosurgery* 40: 46-52, 1997
- 7) McLaughlin MR, Jannetta PJ, Clyde BL: Microvascular decompression of cranial nerves: lessons learned after 4400 operations. *J Neurosurg* 90: 1-8, 1997
- 8) 小野田恵介, 佐藤透, 三好康之, 他: 片側顔面痙攣に対する microvascular decompression の新しい術前画像評価: 3D MR cisternogram/angiogram fusion imaging の応用. *No shinkei geka* 34: 785-791, 2006
- 9) Rath SA, Klein HJ, Richter HP: Findings and long-term results of subsequent operations after failed microvascular decompression for trigeminal neuralgia. *Neurosurgery* 39: 933-940, 1996
- 10) Rogers CL, Shetter AG, Fiedler JA: Gamma knife radiosurgery for trigeminal neuralgia: the initial experience of The Barrow Neurological Institute. *Int J Radiat Oncol Biol Phys* 47: 1013-1019, 2000
- 11) Sindou M, Howeidy T, Acevedo G: Anatomical observations during microvascular decompression for idiopathic trigeminal neuralgia (with correlations between topography of pain and site of the neurovascular conflict) . Prospective study in a series of 579 patients. *Acta Neurochir (Wien)* 144: 1-13, 2002
- 12) Sindou M, Leston J, Decullier E: Microvascular decompression for primary trigeminal neuralgia: long-term effectiveness and prognostic factors in a series of 362 consecutive conflicts who underwent pure decompression. *J Neurosurg* 107: 1144-1153, 2007
- 13) Satoh T, Onoda K, Date I: Fusion imaging of three-dimensional magnetic resonance cisternograms and angiograms for the assessment of microvascular decompression in patients with hemifacial spasms. *J Neurosurg* 106: 82-89, 2007
- 14) Satoh T, Onoda K, Date I: Preoperative simulation for microvascular decompression in patients with idiopathic trigeminal neuralgia: visualization with three-dimensional magnetic resonance cisternogram and angiogram fusion imaging. *Neurosurgery* 60: 104-114, 2007