

1) 論文種別

症例報告

2) 論文タイトル

顔面痙攣で発症し、母血管閉塞で速やかに改善した椎骨動脈瘤
の1症例

3) 全員の著者名

久貝宮仁¹⁾、須山武裕²⁾、乾敏彦¹⁾、山里景祥¹⁾、北野昌彦¹⁾、
長谷川洋¹⁾、富永良子¹⁾、富永紳介¹⁾

4) 著者全員の所属施設、部署

富永病院 脳神経外科¹⁾

関西医科大学総合医療センター 脳神経外科²⁾

5) 連絡著者の氏名、連絡先

Corresponding author (投稿責任者)

久貝 宮仁

富永病院 脳神経外科

〒556-0017 大阪市浪速区湊町 1-4-48

md002042@yahoo.co.jp

6) キーワード

Hemifacial spasm, vertebral artery, aneurysm, endovascular therapy

7) 宣言

本論文を、日本脳神経血管内治療学会 機関誌 JNET journal of
Neuroendovascular therapy に投稿するにあたり、筆頭著者、共著
者によって、国内外の他雑誌に掲載ないし投稿されていないこ
とを宣誓致します。

和文要旨

【目的】顔面痙攣で発症した症候性未破裂紡錘状椎骨動脈瘤に対し母血管閉塞を行い、治療が奏功した稀な一例を経験したので報告する。

【症例】56歳男性。左顔面痙攣を発症し、その後3-4週間で急速に進行し開眼すら困難となった。頭部MRIで最大径約10mmの左紡錘状椎骨動脈瘤を認め、顔面神経のroot exit zone(REZ)を圧迫していた。コイルで左椎骨動脈の母血管閉塞を行い、術直後より顔面痙攣は消失した。術翌日のMRIで瘤は著明に縮小していた。術後半年が経過し顔面痙攣および動脈瘤の再発は認めていない。

【結論】比較的大型の動脈瘤が原因と思われる顔面痙攣に関しては、母血管閉塞も有効な治療である可能性が示唆された。

本文

【諸言】

片側顔面痙攣は神経血管圧迫症候群の一つで、一般的に加齢とともに動脈硬化をきたした責任血管が脳幹近くで顔面神経のroot exit zone (REZ)を圧迫することによって徐々に発病する疾患として知られている¹⁾。対症療法としてボツリヌス毒素治療、薬物療法などを施行するが、根治治療としては微小血管減圧術 (Microvascular decompression : MVD) が行われる。MVDは1970年代のJannettaら²⁾の手術報告から本邦でもその有用性が広く認知され、通常の後頭下開頭で安全にアプローチできることから標準治療として普及している。

動脈瘤が顔面痙攣の原因となることは稀であり、直達手術で治療する報告が多い中で血管内治療の報告はさらに稀である。

今回、顔面痙攣で発症し急速に進行した症候性未破裂紡錘状椎骨動脈瘤に対し、母血管閉塞を行い術直後から速やかに症状が消失した稀な一例を経験した。動脈瘤が原因で発症した顔面痙攣に対して血管内治療は有用な治療方法の1つと考えられた。治療結果を検討し、文献的考察を加え報告する。

【症例提示】

56歳、男性。主訴は左顔面痙攣。高血圧で内服治療中。眼瞼部より左顔面痙攣が出現し、その後3-4週間で頬部筋、口角挙筋、広頸筋へと急速に進行し、強直間代性の痙攣が持続して開眼すら困難な状態となった。前医で頭部MRAにて左未破裂紡錘状椎骨動脈瘤を認め、当科紹介となった。初診時の神経学的所見は顔面神経麻痺、聴力障害などの明らかな神経学的異常所見は認めなかった。また動脈解離を示唆するような頭痛や頸部痛などのエピソードを認めず、過去の頭部外傷やカイロプラクティックなど頸部への回旋やマッサージの既往は無かった。

術前の頭部MRI(Fig.1)で橋の左で椎骨動脈瘤が脳幹を強く圧排しており、顔面神経のREZを圧迫していることが伺えた。MRA、3DCTA、脳血管撮影(Fig.2A,B)では最大径約10mmの左紡錘状椎骨動脈瘤を後下小脳動脈(posterior inferior cerebellar artery: PICA)遠位約20mmに認めた。瘤の血栓化は認めず、動脈瘤から前脊髄動脈の分枝は認めなかった。

以上のことから椎骨動脈瘤によるREZへの圧迫が顔面痙攣の原因と考えた。症候が急速に進行しているため、破裂の予防および顔面痙攣の治療を検討した。開頭による椎骨動脈のトラッピングとMVDの追加や

瘤切除も考慮したが、後頭蓋窩の傍正中中部病変であり難易度が高いことが予想され、左椎骨動脈の血管内治療による母血管閉塞を施行した。

顔面痙攣発症約3ヶ月後に左椎骨動脈の母血管閉塞術を行った。対側椎骨動脈はほぼ患側と同径であり、左椎骨動脈の balloon occlusion test (BOT)は施行しなかった。治療の1週間前からアスピリン100mg/日、クロピドグレル75mg/日の抗血小板薬を開始した。全身麻酔下に、全身ヘパリン化を行い、activated clotting time (ACT)を200-250秒とした。システムは右大腿動脈経路で6Fr.Optimo(東海メディカル、愛知)を左椎骨動脈に留置後、Excelsior SL-10 (STR)(Stryker,Kalamazoo,MI,USA)を Silverspeed 10(Medtronic, Minneapolis, NM, USA)で瘤内まで誘導した。Optimo の balloon を拡張して proximal flow control を行い、Target (Stryker,Kalamazoo,MI,USA) XL360soft 9×30 を first coil として、意図的に瘤内を比較的 rough に巻いて詰め戻りながら近位椎骨動脈までの約1.5cmを6本のTargetコイル、3本のAXIUM(Medtronic, Minneapolis, NM, USA)コイルの計9本にて塞栓して母血管閉塞を行った(Fig.3A,B)。瘤より遠位の正常血管の塞栓は虚血性合併症を誘発するおそれがあり行わなかった。対側の椎骨動脈撮影で動脈瘤の描出が無いことを確認したが、対側椎骨動脈からの瘤へのアクセスも容易な形状でもあり、動脈瘤の再発を認めるなら、対側から瘤内塞栓術を追加する方針として治療を終了した(Fig.3C)。

麻酔覚醒後より顔面痙攣は消失した。術翌日のMRIでも瘤は著明に縮小していた(Fig.4A)。術後アルガトロバン60mg/日を2日間持続投与とした。新たな神経症状の出現はなく、術後の diffusion weighted image(DWI)でも異常はなく、術後3日で modified Rankin Scale(mRS) 0

にて独歩退院した。抗血小板薬は1剤ずつ減薬し2ヶ月で終了した。術後半年経過時点で顔面痙攣の再発はなく、MRIで瘤は縮小したままであった (Fig.5A)。

【考察】

片側顔面痙攣の原因として最も多いのは血管圧迫であり、椎骨動脈瘤による圧迫で発症するものは稀で0.2-0.6%とされている³⁻⁶⁾。その他にも腫瘍⁷⁾、血管腫⁸⁾、脳動静脈奇形⁹⁾などの報告がある。本症例は動脈瘤により顔面痙攣が急速に進行したが、動脈瘤により顔面痙攣が増悪をきたす期間は、過去の報告からは6~38ヶ月とされ^{3-6,10-12)}、本症例のように急速に進行したとする報告はなかった。本症例では症状の進行に動脈瘤の増大が関与した可能性が考えられ、治療を検討した。

本症例の治療に関しては、顔面痙攣の消失および瘤の増大を予防する目的で治療を行った。直達手術ではMVDのみの報告、さらにクリッピング、ラッピング、トラッピング、近位部閉塞を追加した報告などがある^{6,10,11)}。症状は術直後から消失または軽減する傾向にあったとしている。しかし一般的なMVDでも、聴力障害、顔面神経麻痺、小脳梗塞などが報告されており¹³⁾、本症例で直達手術を選択した場合は、比較的大型の動脈瘤による神経への圧迫を解除する手術であるため、難易度が高いと推測され、今回は血管内治療を選択した。一方、顔面痙攣に対する血管内治療の報告例として、論文を渉猟した限り4つの報告があった。全て本邦からの報告で、治療はいずれも母血管閉塞であった^{3-5,12)}。瘤内のtight packingを含めた母血管閉塞^{4,12)}、近位のみ母血管閉塞³⁾、瘤を塞栓しないendovascular trapping⁵⁾が行われており、いずれも血管内治療は有効であった。顔面痙攣の改善に関して、母血管閉塞術を行った

報告はいずれも術後 3-6 ヶ月経過ののちに症状が消失している。本症例では麻酔覚醒直後から顔面痙攣の消失を確認した。直後から症状が消失した理由は明確ではないが、**mass effect**を生じないように瘤内を意図的に **rough** に詰めたことで、コイルによる不必要な REZ の圧迫を生じなかったためと考えた。Nagashima ら³⁾もわずかな血管の位置の変化や血行力学的変化により症状が改善される可能性があるとしている。直達手術では REZ への圧迫が物理的に解除されるため術直後から症状が消失、軽快するが、血管内治療では母血管閉塞で血管の拍動および瘤圧が下がるとしても **mass effect** の軽減に時間を要すると考えられる。おそらく母血管閉塞により血管の拍動は減弱しても、瘤の血栓化やコイルが **mass effect** となって REZ の圧迫がすぐには解除されないためであろう。瘤内を **tight packing** するかどうかは意見が分かれるところである。

Nakagawa ら¹²⁾は瘤内塞栓も含めた母血管閉塞を報告しており、単純に母血管閉塞を行うと対側 VA からの逆流で動脈瘤の拍動を押さえるのに不十分であるとし、瘤と母血管をともに塞栓することで、瘤内への血流を完全に遮断し、かつ動脈から顔面神経 REZ への拍動を押さえることが症状改善につながるとした。よって、症例ごとに検討が必要であるが、血管内治療による母血管閉塞も治療選択の一つとして有用である。

母血管を温存することを企図してステント併用動脈瘤塞栓術も検討すべき治療法の 1 つであるが、紡錘状の動脈瘤の場合はステントの周囲を **tight packing** しなければならないため、**mass effect** の軽減が期待できなかった。また母血管閉塞で症状が軽快しない場合は直達手術での動脈瘤切除の可能性も考慮した。その際、椎骨動脈にステントが留置されていた場合に瘤切除が困難になる可能性を危惧し母血管閉塞とした。また、

渉猟する限り、顔面痙攣で発症した動脈瘤に対して、ステントアシストでのコイル塞栓術や flow diverter を用いた報告はなく、ステントアシストによるコイル塞栓術で動脈瘤の拍動や mass effect が軽減して症状が改善するかどうかは、現時点では不明である。また PICA が瘤から分枝し母血管閉塞が困難になる場合は、血管内治療の適応を慎重に検討する必要がある、ステント併用コイル塞栓術も治療の選択肢の一つになる。

【結語】

血管内治療が奏効した、稀な症候性未破裂紡錘状椎骨動脈瘤を経験した。顔面痙攣の標準的治療が MVD であることに議論の余地は無いが、比較的大型の動脈瘤が原因と思われる顔面痙攣に関しては、血管内治療による母血管閉塞も有効な根治的治療である可能性が示唆された。

利益相反開示

筆頭著者および共著者全員が利益相反はない。

文献

- 1) Matsushima T, Mineta T. Microvascular compression syndrome: review and update of microvascular decompression surgery. No Shinkei Geka. 2008; 36:303-13.
- 2) Jannetta PJ, Abbasy M, Maroon JC, et al. Etiology and definitive microsurgical treatment of hemifacial spasm. Operative techniques and results in 47 patients. J Neurosurg. 1977; 47:321-8.

- 3) Nagashima H, Orz Y, Okudera H, et al. Remission of hemifacial spasm after proximal occlusion of vertebrobasilar dissecting aneurysm with coils: case report. *J Clin Neurosci*. 2001; 8:43-5.
- 4) Sato K, Ezura M, Takahashi A, Fusiform aneurysm of the vertebral artery presenting hemifacial spasm treated by intravascular embolization: case report. *Surg Neurol*. 2001; 56:52-5.
- 5) Matsumoto K, Kimura S, Kakita K. Endovascular treatment of vertebral artery aneurysm manifesting as progressive hemifacial spasm. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 2005; 45:360-2.
- 6) Takahara M, Abe H, Ohkawa M, et al. Hemifacial spasm caused by a dissecting aneurysm of the vertebral artery, and resulting in acute exacerbation. *No Shinkei Geka*. 2013; 41:241-6.
- 7) Kudo A, Suzuki M, Kubo N, et al. Schwannoma arising from the intermediate nerve and manifesting as hemifacial spasm. Case report. *J Neurosurg*. 1996; 84:277-9.
- 8) Asaoka K, Sawamura Y, Tada M, et al. Hemifacial spasm caused by a hemangioma at the geniculate ganglion: case report. *Neurosurgery*. 1997; 41:1195-7.
- 9) Konan AV, Roy D, Raymond J. Endovascular treatment of hemifacial spasm associated with a cerebral arteriovenous malformation using transvenous embolization: case report. *Neurosurgery*. 1999; 44:663-6.

- 10)Matsumoto K, Saijo T, Kuyama H, Asari S, et al. Hemifacial spasm caused by a spontaneous dissecting aneurysm of the vertebral artery. Case report. J Neurosurg. 1991; 74:650-2.
- 11)Uchino M, Nomoto J, Ohtsuka T, et al. Fusiform aneurysm of the vertebral artery presenting with hemifacial spasm treated by microvascular decompression. Acta Neurochir (Wien). 2005; 147:901-3.
- 12)Nakagawa I, Takayama K, Kurokawa S, et al. Hemifacial spasm due to contralateral aneurysmal compression of the facial nerve successfully treated with endovascular coil embolization: case report. Neurosurgery. 2011; 69:E768-71
- 13)Kondo A, Date I, Endo S, et al. A proposal for standardized analysis of the results of microvascular decompression for trigeminal neuralgia and hemifacial spasm. Acta Neurochir (Wien). 2012; 154:773-778.

図表の説明

Figure 1 術前 MRI constructive interference in steady state (CISS)像で脳幹（橋）の左側を強く圧排している左椎骨動脈瘤を認めた。顔面神経 REZ が圧迫されていることが示唆される。

Figure 2

A：術前左椎骨動脈撮影 正面像。 最大径約 10mm の左紡錘状椎骨動脈瘤を PICA 遠位約 20mm の VA union 近傍の VA trunk に認めた。

B：術前左椎骨動脈撮影 側面像。

Figure 3

A：コイル塞栓術後。計 9 本にて塞栓して母血管閉塞を行った。

B：術後左椎骨動脈撮影。動脈瘤の描出は認めず、PICA も温存されている。

C：術後右椎骨動脈撮影。対側からの back flow で動脈瘤の描出は認めなかった。

Figure 4

A：術後 MRI T2 強調画像で、動脈瘤の著明な縮小を認めた。

B：術後 MRA で左椎骨動脈瘤の描出を認めなかった。

Figure 5

A：術後 6 ヶ月の MRI で、動脈瘤は縮小したままであった。

B：術後 6 ヶ月の MRA で、動脈瘤の再発は認めなかった。

Figure 1

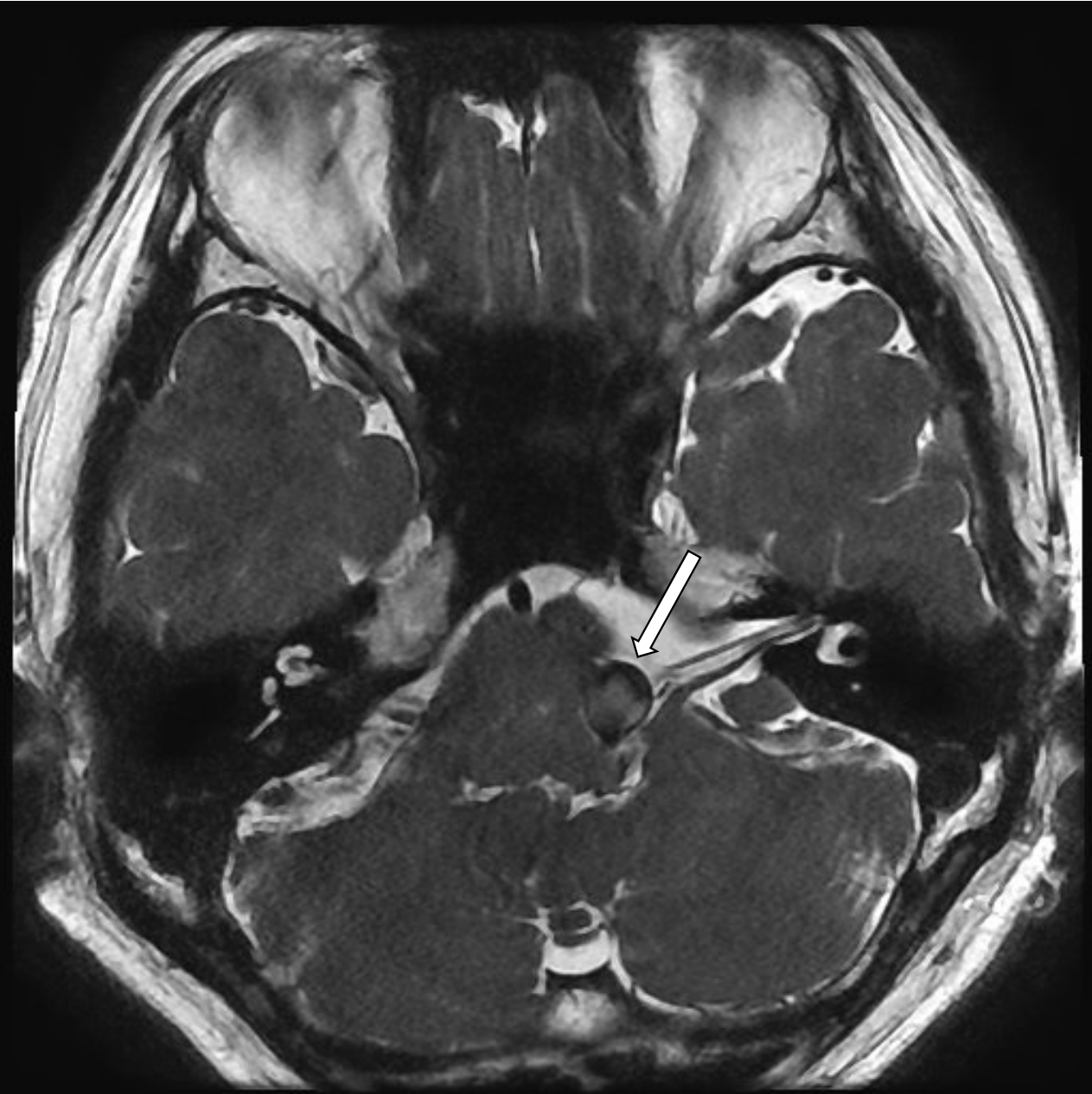




Figure 2

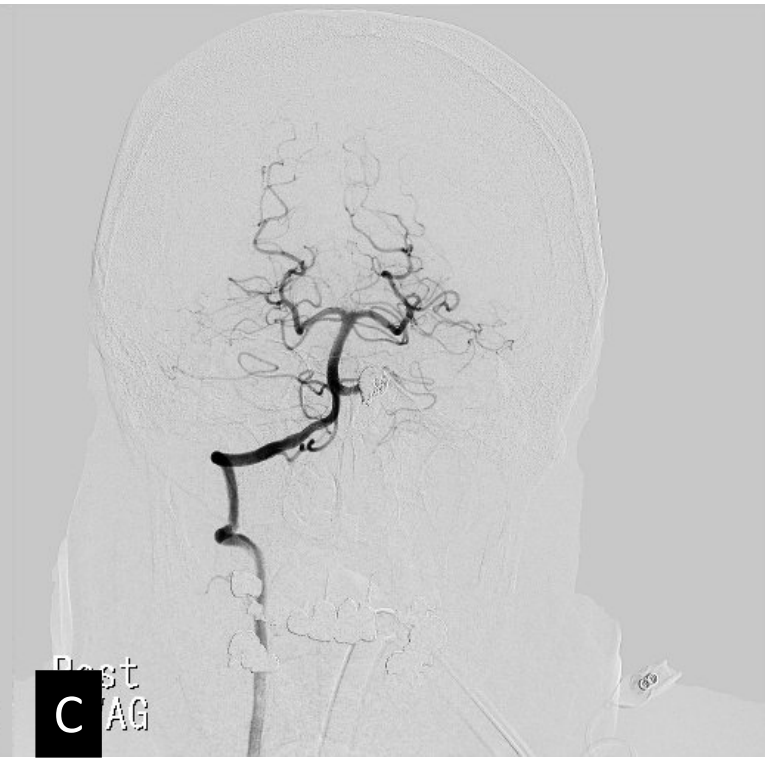
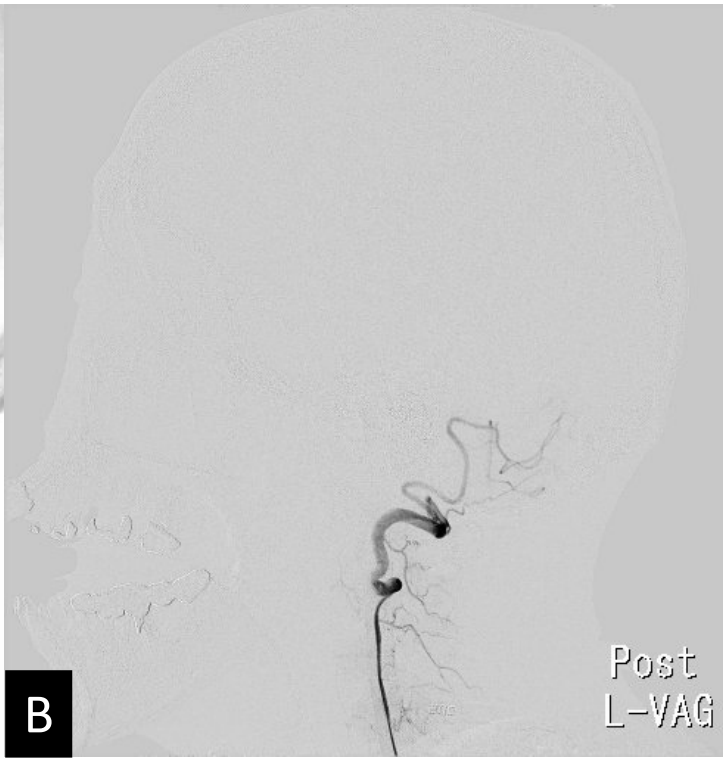
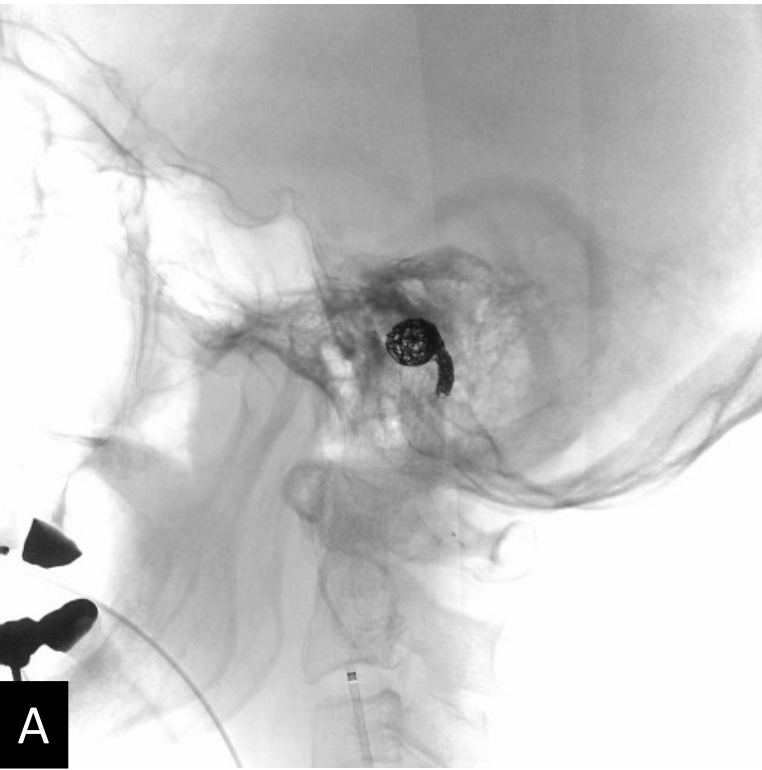


Figure 3

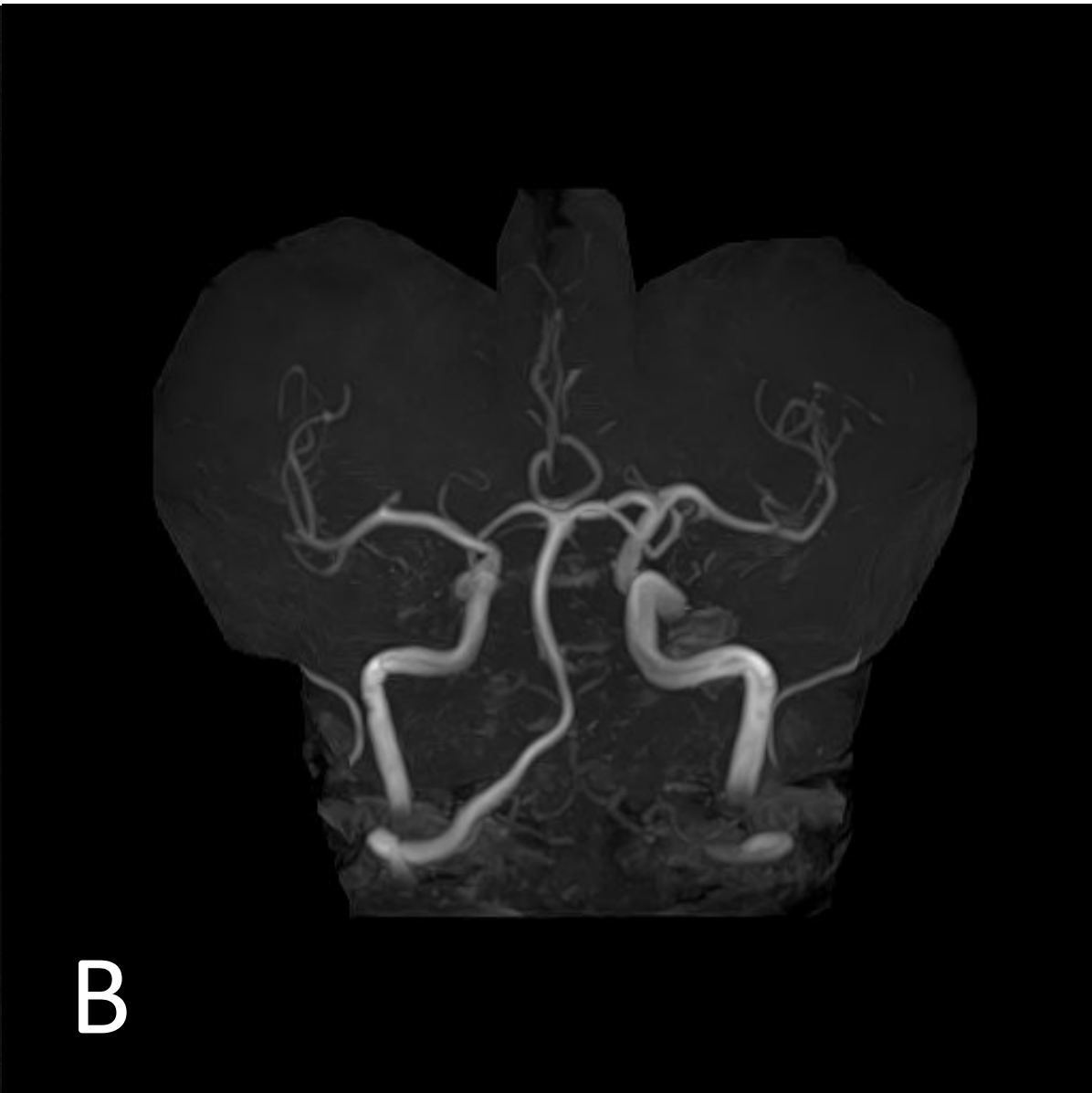
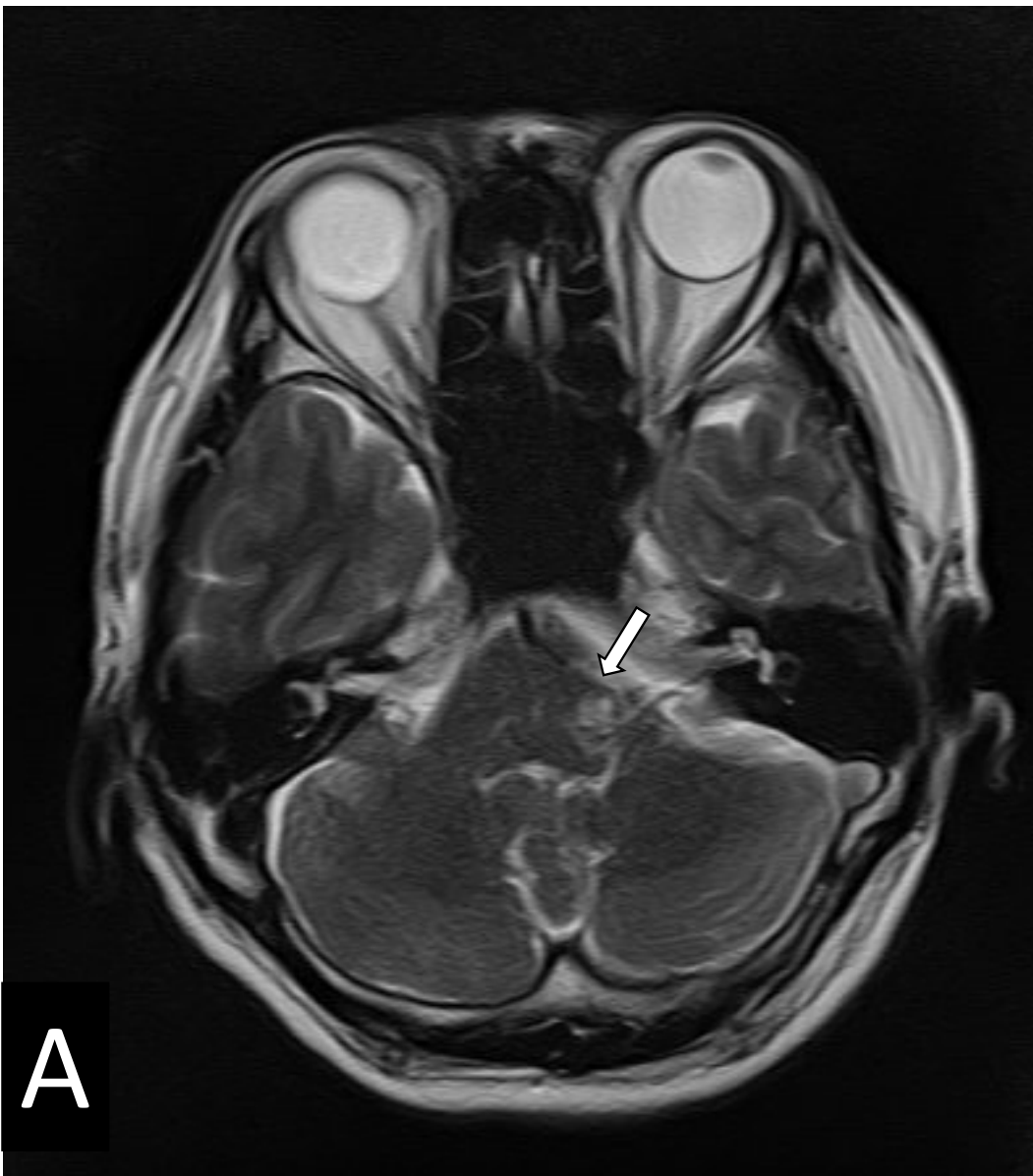


Figure 4



Figure 5