

1) 論文種別

症例報告

2) 論文タイトル

Multimodal treatment において塞栓術が有用であった、三叉神経痛で発症した high-grade AVM の 1 症例

3) 全員の著者名

久貝宮仁<sup>1)</sup>、須山武裕<sup>2)</sup>、北野昌彦<sup>1)</sup>、長谷川洋<sup>1)</sup>、富永良子<sup>1)</sup>、富永紳介<sup>1)</sup>

4) 著者全員の所属施設、部署

富永病院 脳神経外科<sup>1)</sup>

関西医科大学総合医療センター 脳神経外科<sup>2)</sup>

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

trigeminal neuralgia, vertebral artery,

arteriovenous malformation, embolization, multimodal treatment

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】 三叉神経痛で発症した脳動静脈奇形に対し multimodal treatment を行い、症状が消失した稀な一例を経験したので報告する。

【症例】 68歳、男性。右三叉神経痛を発症し、電撃痛を伴い進行した。MRI で右側頭葉に約 50mm の脳動静脈奇形を認めた。拡張蛇行した右椎骨動脈が右三叉神経を内側から圧排していた。4 回目の塞栓術後に三叉神経痛が完全に消失した。計 6 回の塞栓術を行い、摘出術を行った。摘出術後半年が経過したが、再発を認めていない。

【結論】 脳動静脈奇形に起因する三叉神経痛に関しては、nidus の治療を行うことで三叉神経痛が改善する可能性が示唆された。特に high-grade AVM に対する multimodal treatment において、塞栓術は有用な modality と考えた。

## 本文

### 【諸言】

三叉神経痛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血管が脳幹近くで三叉神経の root exit zone (REZ) を圧迫することによって発病する疾患で、主な責任血管として上小脳動脈 (superior cerebellar artery : SCA)、前下小脳動脈 (anterior inferior cerebellar artery : AICA)、椎骨動脈 (vertebral artery : VA) が知られている。カルバマゼピンなど薬剤による対症療法、ガンマナイフなどによる放射線治療 (stereotactic radiosurgery : SRS) も行われているが、根治治療としては微小血管減圧術 (microvascular decompression : MVD) が行われる<sup>1)</sup>。脳動静脈奇形 (cerebral arteriovenous malformation : AVM) が三

又神経痛の原因となることは稀であり、直達手術<sup>2,3,4,5,6,7)</sup>や SRS<sup>8,9)</sup>での報告が多い中で塞栓術<sup>4,9,10,11,12,13)</sup>の報告も散見される。今回、三叉神経痛で発症した high-grade AVM に対し multimodal treatment を行い症状が消失した稀な一例を経験した。【症例提示】

68 歳、男性。約 15 年前に AVM に起因する右三叉神経痛を発症。食事、洗顔、発語で電撃痛が誘発され、カルバマゼピンを中心とした薬物治療を行ってきたが効果不十分であった。症状が進行し 2 年前に三叉神経根に対してガンマナイフを施行されたが効果が見られず、当科紹介となった。初診時の神経学的所見に異常は認めなかった。MRI、MRA、3DCTA、脳血管撮影では右側頭葉内側部に約 50mm の AVM を認め (Fig.1-A,B)、盗血現象による脳浮腫を認めた。Feeder は middle cerebral artery(MCA)、posterior cerebral artery(PCA)、anterior choroidal artery、drainer は great cerebral vein of Galen、basal vein of Rosenthal、vein of Labbe で、Spetzler-Marin(SM) grading scale で Grade IV であった (Fig.2, 3)。また intranidal aneurysm は認めなかったが、anterior choroidal artery 起始部に約 2mm の feeder aneurysm を合併していた。術前の頭部 MRI constructive interference in steady state (CISS)像で拡張蛇行した右 VA によって右三叉神経が内側から強く圧排され、大きく偏移していた (Fig.1-C)。以上のことから VA による三叉神経への圧迫が三叉神経痛の原因と考えた。症状が内科的治療、SRS により軽快しないことから、外科的な三叉神経痛の治療を検討した。開頭による VA の MVD も考慮したが、盗血現象の存在、深部局在、feeder aneurysm の合併および主な導出静脈が深部静脈であることを考慮し<sup>14,15)</sup>、今後の盗血現象の進行、AVM 出血のリスクも排除したいと考えた。また三叉神経痛もあることから、総

合的に判断して症候性に準じて治療方針を検討した。Nidus を治療することで、血流が低下し feeder が縮小することにより、三叉神経への拍動性圧迫が解除され三叉神経痛を軽減させるとの報告もあり<sup>4,9,10,11,12,13</sup>、本症例は high-grade AVM であるため multimodal treatment で nidus の治療を行い、出血リスクの排除および三叉神経痛の治療を目指した。Multi stage での塞栓術後に摘出術を行い、最終的に三叉神経痛が改善しないならば二期的に MVD を追加する予定で、1-3 ヶ月の間隔で計 6 回の塞栓術後、摘出術を施行した。

全身麻酔下に手技を施行し、N-butyl cyanoacrylate (NBCA, Histoacryl; B.Braun, Melsungen, Germany)、Onyx Liquid Embolic System (Onyx; ev3 Neurovascular, Covidien, Plymouth, MN, USA) で塞栓を行った。1 回目は MCA からの feeder の、2-4 回目は PCA からの feeder の塞栓を NBCA および Onyx を用いて行った。4 回目の塞栓で Onyx を使用し AVM の大部分を塞栓することができ、後方循環からは AVM は描出されなくなった (Fig.4)。3 回目までの塞栓術では三叉神経痛は全く改善を示さなかったが、4 回目の塞栓術後から改善を示した。約 1 ヶ月半後に三叉神経痛が完全に消失し、カルバマゼピンを中止した。その後、5 回目に MCA からの feeder の、6 回目に anterior choroidal artery からの feeder の塞栓術を NBCA で行い AVM は血管撮影上、ほぼ完全閉塞となった。4 回目の塞栓から 6 回目の塞栓の間隔は約 5 ヶ月であったが、その間症状の再発は全く見られなかった。

最終塞栓から 3 日後、開頭手術にて全摘出することができた (Fig.5-A)。術後も三叉神経痛が消失していたため MVD は追加しなかった。術後の頭部 MRI CISS 像では右 VA による右三叉神経の圧迫は継続してい

た(Fig.5-B)。術3週間後、軽度の小脳失調が残存したが mRS 1 で退院となり、その後の経過観察で改善した。摘出術から半年が経過したが、三叉神経痛の再発は認めていない。Anterior choroidal artery に合併していた feeder aneurysm は変化がなく経過観察している。

#### 【考察】

原発性三叉神経痛における AVM に起因する三叉神経痛の割合は 0.22~1.78%で、原因となる AVM の 97.5%は後頭蓋窩に位置するとされる<sup>13)</sup>。責任血管は feeder となっている SCA が最多で<sup>12)</sup>、nidus や拡張した drainer による圧迫も報告されている<sup>7,8,12,13)</sup>。三叉神経痛で発症した AVM に関しては確立された治療方針はなく、症例ごとの検討が必要である。直達手術では①AVM 自体の治療は行わず MVD のみを行う報告<sup>5,7)</sup>、②AVM 摘出のみを行い MVD は行わない報告<sup>2)</sup>、③摘出と MVD を同時に施行する報告<sup>2)</sup>、④MVD 後に SRS を行ったとする報告<sup>6)</sup>、⑤SRS 後に MVD を行ったとする報告<sup>3)</sup>、⑥塞栓術後に摘出を行ったとする報告<sup>4)</sup>、などがある。Edwards ら<sup>2)</sup>は、症状を軽快させるだけでなく、出血リスクも排除するために AVM の摘出を推奨しており、筆者らの治療方針もこれに準ずる。Wanke<sup>4)</sup>らも塞栓術後に症状は改善したが、三叉神経痛の再発を予防するために摘出術を追加した。逆に García-Pastor ら<sup>5)</sup>は、AVM の摘出は必ずしも必要でなく、MVD のみを行うことが最善とした。いずれにせよ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。よって摘出術に固執することなく、出血リスクや手術リスクを考慮して柔軟に三叉神経痛の治療を検討することが重要と思われた。Low-grade AVM ならば単純に摘出術のみで三叉神経痛が解除される可能性がある。High-grade AVM では1つの modality で nidus の治療が

安全に完結しないことが予想され、multimodal treatment を行うことが望ましい。また multimodal treatment でも症状の改善がなければ MVD も検討しなければならぬ。直達手術以外では⑦ SRS のみで有効であったとする報告<sup>8)</sup>、⑧ 塞栓術のみで有効であったとする報告<sup>10,11,12,13)</sup>、⑨ 塞栓術後に SRS を行ったとする報告<sup>9)</sup>、なども散見される。摘出術および MVD のリスクが高いと想定される場合は、SRS や塞栓術といった非侵襲的な modality も検討できる。塞栓術のみで根治に持ち込める場合も同様に三叉神経痛は解除されると思われる。治療困難な high-grade AVM に対しては SRS と塞栓術を合わせた multimodal treatment は有効な選択肢と考えた。ただし SM grading scale で grade III,IV の high-grade AVM は、外科的治療に伴う morbidity, mortality が約 15-40%と報告されている<sup>18)</sup>。不完全な治療は自然歴よりも出血率を高めるため、最終的に摘出することを念頭に治療戦略を立てなければならない<sup>16,17)</sup>。よって部分塞栓でも血流が低下する事によって症状が改善される可能性はあるが、安易な塞栓術のみの治療は厳に慎まなければならない。また high-grade AVM の出血率に関しては議論があり<sup>19)</sup>、一概に high-grade AVM の出血率が低いとは言えないため、症例ごとの検討を要する。

塞栓術に関しては、三叉神経を直接圧迫している責任血管を閉塞するのではなく、nidus を標的として塞栓することになる。結果として nidus のサイズを縮小させるだけでなく、血流が低下し feeder が縮小することにより、三叉神経への拍動性圧迫が解除され三叉神経痛を比較的早期に軽減させると報告され、塞栓術の有効性が示唆されている<sup>9,10,11,12,13)</sup>。

Yuan ら<sup>13)</sup>は、術後 1 週間で完全に三叉神経痛が改善したと報告した。

責任血管が拡張した流出静脈である場合でも、塞栓術で症状改善の効果

は同様であったとする報告もあった<sup>12)</sup>。一方、塞栓術のみでは長期的な効果が見込めない可能性も示唆されており、AVMの再開通に伴って三叉神経痛の再発をきたし、数回の塞栓術を要したとの報告も見られる<sup>11)</sup>。また、塞栓術に摘出術以外の治療を追加し症状の改善がえられた報告もある。Moriら<sup>9)</sup>は塞栓術後に症状が軽快、その後nidusにSRSを行い症状が消失した症例を報告し、nidusの消退に伴い責任血管であるSCAの拡張が軽減したのが要因とした。本症例では4回目の塞栓術で後方循環から造影されなくなった1か月半後に、三叉神経痛が完全に消失した。4回目の塞栓術で後方循環の血流が減少し、責任血管である右VAへの拍動性の圧迫が軽減したと考えた。High-grade AVMにおいてもmulti stageでの塞栓術を行う事で三叉神経痛の解除を得られる可能性が示唆され、multimodal treatmentの中での塞栓術の有用性を確認できた。摘出術後の頭部MRI CISS像(Fig.5-B)では右VAによる右三叉神経の圧迫所見は画像上解除されてはいなかったが、VAの流量低下に伴い三叉神経に対する拍動が減少したため三叉神経痛が解除されたものと考えた。またAVMが後頭蓋窩でなく、本症例のように三叉神経から離れた場所に位置していても、AVM塞栓術を行うことによって流量が低下し拍動が減少すれば、三叉神経痛が解除される可能性も示唆される<sup>9)</sup>。また塞栓術の目的は、nidusを減圧し摘出を容易にすること、normal perfusion pressure breakthrough (NPPB)現象の予防、術野で確保が困難な深部からのfeederの処理なども挙げられる。本症例の摘出術では術野はほぼ無血であった。High-grade AVMに対するmultimodal treatmentにおいて塞栓術の有用性は極めて高いと考えた。

以上から、直接三叉神経痛の改善を目的とする MVD 以外でも、AVM 摘出術、塞栓術、SRS によって、或いはその組み合わせによって AVM の血流を減少させ三叉神経痛を軽快または解除できる可能性が示された。近年 AVM に起因する三叉神経痛に対する塞栓術の報告も増え、その役割は拡大しつつある。しかし塞栓術で治療を行う場合、三叉神経痛の改善だけを企図するのではなく、nidus の治療も可能な限り行うべきである。残存した場合には摘出術、塞栓術、SRS での各々の追加治療について慎重に検討する必要がある。High-grade AVM で nidus 自体を完全に消滅させることが困難と判断したならば、当初から MVD のみを行うことも選択肢として考慮しなければならない。

#### 【結語】

AVM に起因する三叉神経痛に関しては、nidus の治療を行うことで血流が低下し、feeder が縮小することにより三叉神経への拍動性圧迫が軽減され三叉神経痛が改善する可能性が示唆された。特に high-grade AVM に対する multimodal treatment では塞栓術が有用な modality と考えた。しかし出血リスクや手術リスクを考慮して柔軟に三叉神経痛の治療を検討することが重要である。

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) Edwards RJ, Clarke Y, Renowden SA, et al. Trigeminal neuralgia caused by microarteriovenous malformations of the trigeminal nerve root entry zone: symptomatic relief following complete excision of the lesion with nerve root preservation. *J Neurosurg*. 2002; 97:874-880.
- 3) Sato K, Jokura H, Shirane R, et al. Trigeminal neuralgia associated with contralateral cerebellar arteriovenous malformation. Case illustration. *J Neurosurg*. 2003; 98:1318.
- 4) Wanke I, Dietrich U, Opperl F, et al. Endovascular treatment of trigeminal neuralgia caused by arteriovenous malformation: is surgery really necessary? *Zentralbl Neurochir*. 2005; 66:213-216.
- 5) García-Pastor C, López-González F, Revuelta R, et al. Trigeminal neuralgia secondary to arteriovenous malformations of the posterior fossa. *Surg Neurol*. 2006; 66:207-211.
- 6) Sumioka S, Kondo A, Tanabe H, et al. Intrinsic arteriovenous malformation embedded in the trigeminal nerve of a patient with trigeminal neuralgia. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 2011; 51:639-41.
- 7) Inoue T, Shima A, Hirai H, et al. Trigeminal Neuralgia Due to Red Vein Draining a Supratentorial Arteriovenous Malformation: Case Report. *J Neurol Surg Rep*. 2016; 77:e109-112.

- 8) Anderson WS, Wang PP, Rigamonti D. Case of microarteriovenous malformation-induced trigeminal neuralgia treated with radiosurgery. *J Headache Pain*. 2006; 7:217-221.
- 9) Mori Y, Kobayashi T, Miyachi S, et al. Trigeminal neuralgia caused by nerve compression by dilated superior cerebellar artery associated with cerebellar arteriovenous malformation: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)*. 2014; 54:236-241.
- 10) Lesley WS. Resolution of trigeminal neuralgia following cerebellar AVM embolization with Onyx. *Cephalalgia*. 2009; 29:980-985.
- 11) Simon SD, Yao TL, Rosenbaum BP, et al. Resolution of trigeminal neuralgia after palliative embolization of a cerebellopontine angle arteriovenous malformation. *Cent Eur Neurosurg*. 2009; 70:161-163.
- 12) Ge H, Lv X, Jin H, et al. Role of endovascular embolization for trigeminal neuralgia related to cerebral vascular malformation. *Interv Neuroradiol*. 2016; 22:600-605.
- 13) Yuan Y, Zhang Y, Luo QI, et al. Trigeminal neuralgia caused by brain arteriovenous malformations: A case report and literature review. *Exp Ther Med*. 2016; 12:69-80.
- 14) Brown RD Jr, Wiebers DO, Forbes GS. Unruptured intracranial aneurysms and arteriovenous malformations: frequency of intracranial hemorrhage and relationship of lesions. *J Neurosurg*. 1990; 73:859-863.
- 15) Gross BA, Du R. Natural history of cerebral arteriovenous malformations: a meta-analysis. *J Neurosurg*. 2013; 118:437-443.

- 16)Miyamoto S, Hashimoto N, Nagata I, et al. Posttreatment sequelae of palliatively treated cerebral arteriovenous malformations. Neurosurgery. 2000; 46:589-594.
- 17)Han PP, Ponce FA, Spetzler RF. Intention-to-treat analysis of Spetzler-Martin grades IV and V arteriovenous malformations: natural history and treatment paradigm. J Neurosurg. 2003; 98(1):3-7.
- 18)Spetzler RF, Zabramski JM. Grading and staged resection of cerebral arteriovenous malformations. Clin Neurosurg. 1990; 36:318-337.
- 19)Jayaraman MV, Marcellus ML, Do HM, et al. Hemorrhage rate in patients with Spetzler-Martin grades IV and V arteriovenous malformations: is treatment justified? Stroke. 2007; 38:325-329.

#### 図表の説明

##### Figure 1

A : 術前 MRI T2 強調画像 軸位断。

B : 術前 MRI T2 強調画像 冠状断。

右側頭葉に最大径約 50mm の AVM を認め、Spetzler-Marin grading scale で Grade IV であった。

C : 術前 MRI constructive interference in steady state (CISS)像で右三叉神経を内側から強く圧排している右椎骨動脈を認めた。三叉神経が大きく偏移していることが分かる。

##### Figure 2

A : 術前右内頸動脈撮影 正面像。

B : 術前右内頸動脈撮影 側面像。

右側頭葉に右中大脳動脈、右前脈絡叢動脈から多数の feeder を認め  
めた。

#### Figure 3

A : 術前右椎骨動脈撮影 正面像。

B : 術前右椎骨動脈撮影 側面像。

右側頭葉に右後大脳動脈から多数の feeder を認め、  
拡張蛇行した右椎骨動脈を認めた。

#### Figure 4

A : 右椎骨動脈撮影 正面像。

B : 左椎骨動脈撮影 正面像。

4 回目の塞栓術後。後方循環から AVM は描出されなくなった。

#### Figure 5

A : 術後 MRI T2 強調画像で、AVM は全摘出されている。

B : 摘出術後 MRI constructive interference in steady state (CISS) 像。右  
三叉神経を内側から強く圧排している右椎骨動脈に著変を認めな  
かったが、三叉神経痛は消失した。

Figure 1

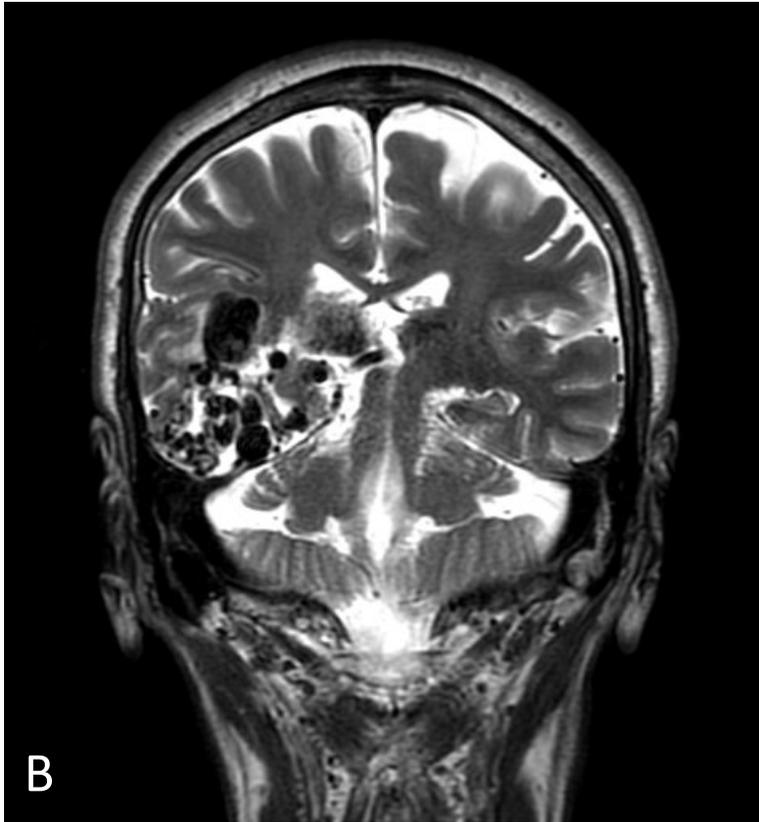


Figure 2

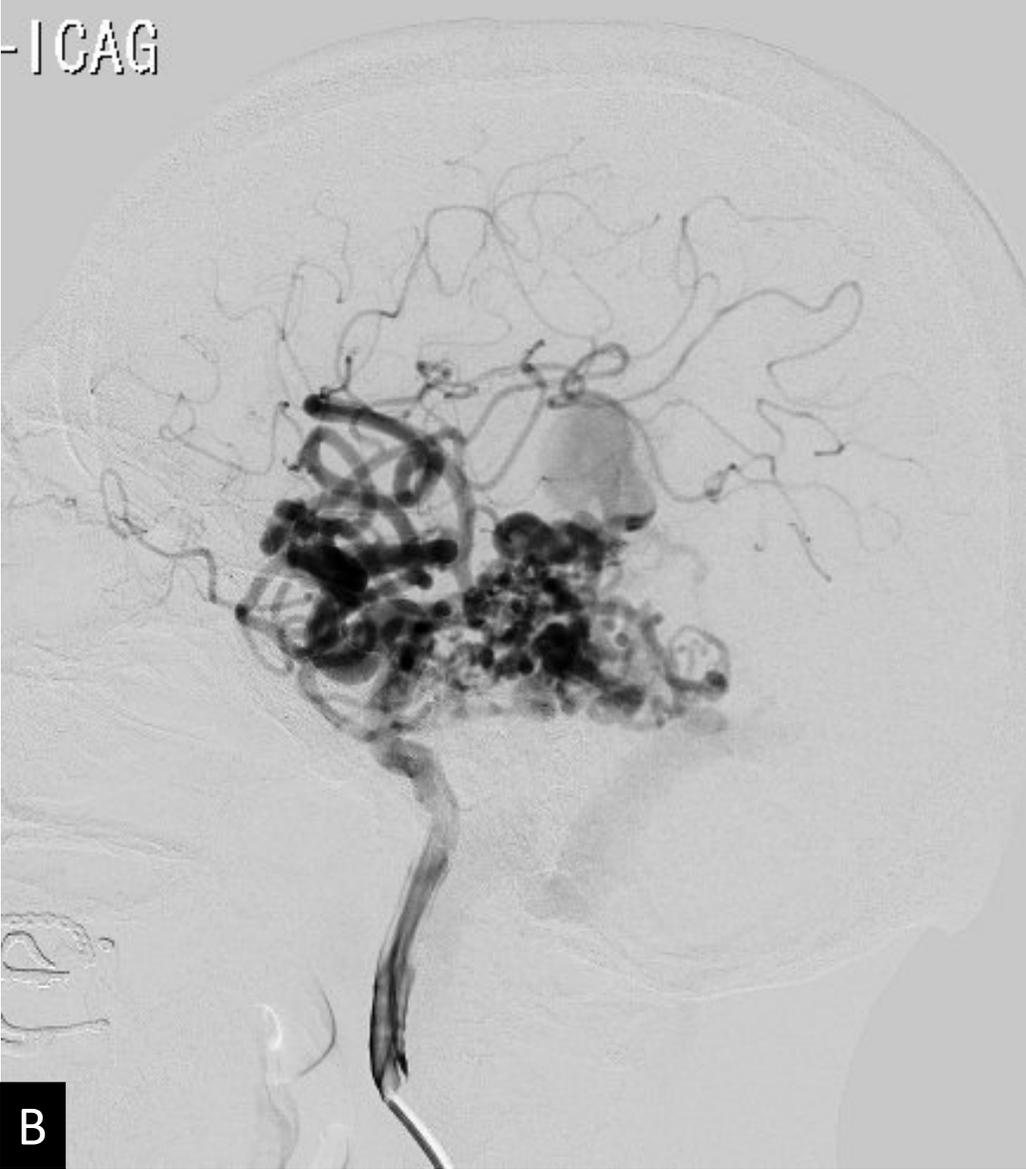


Figure 3

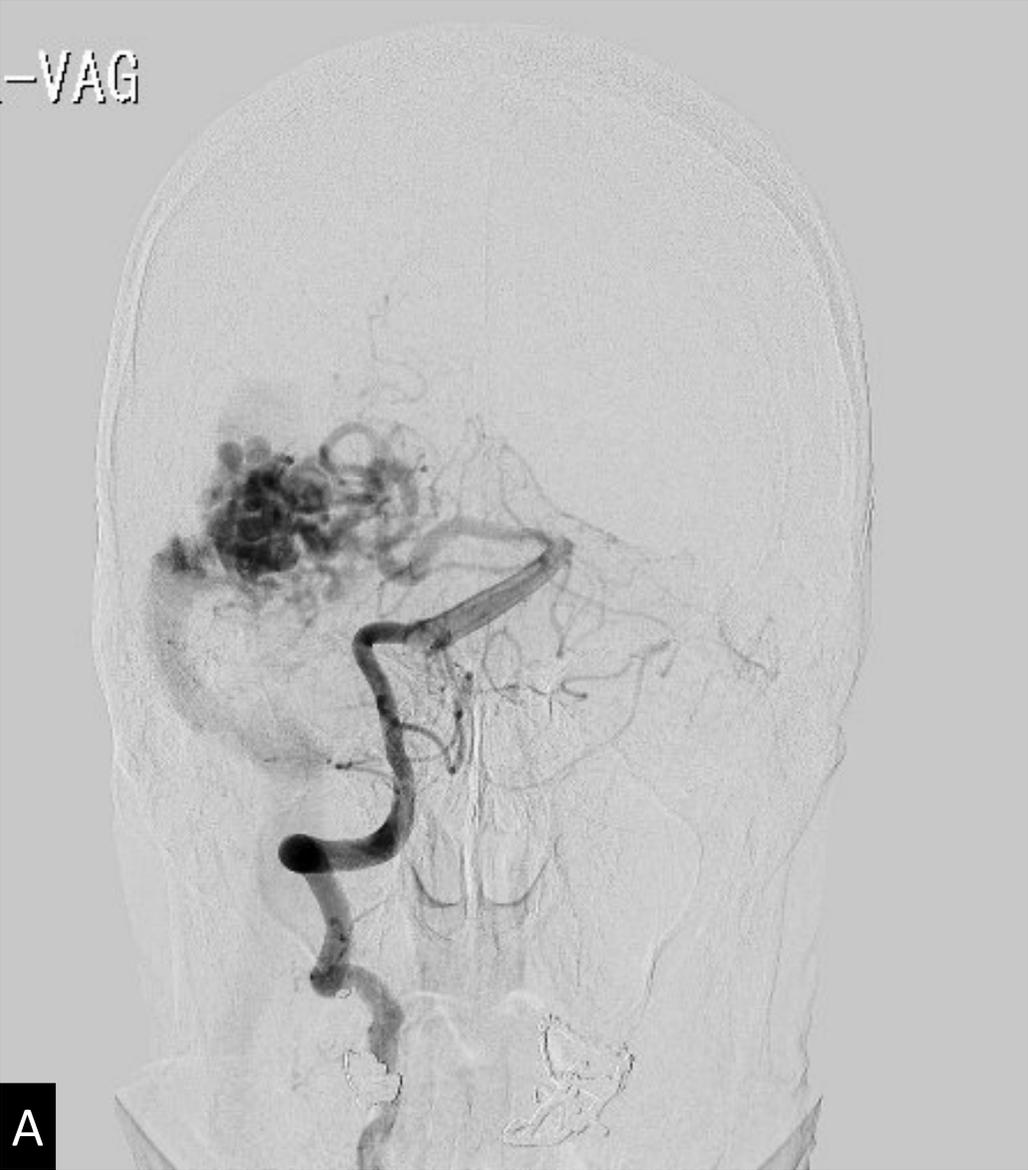




Figure 4

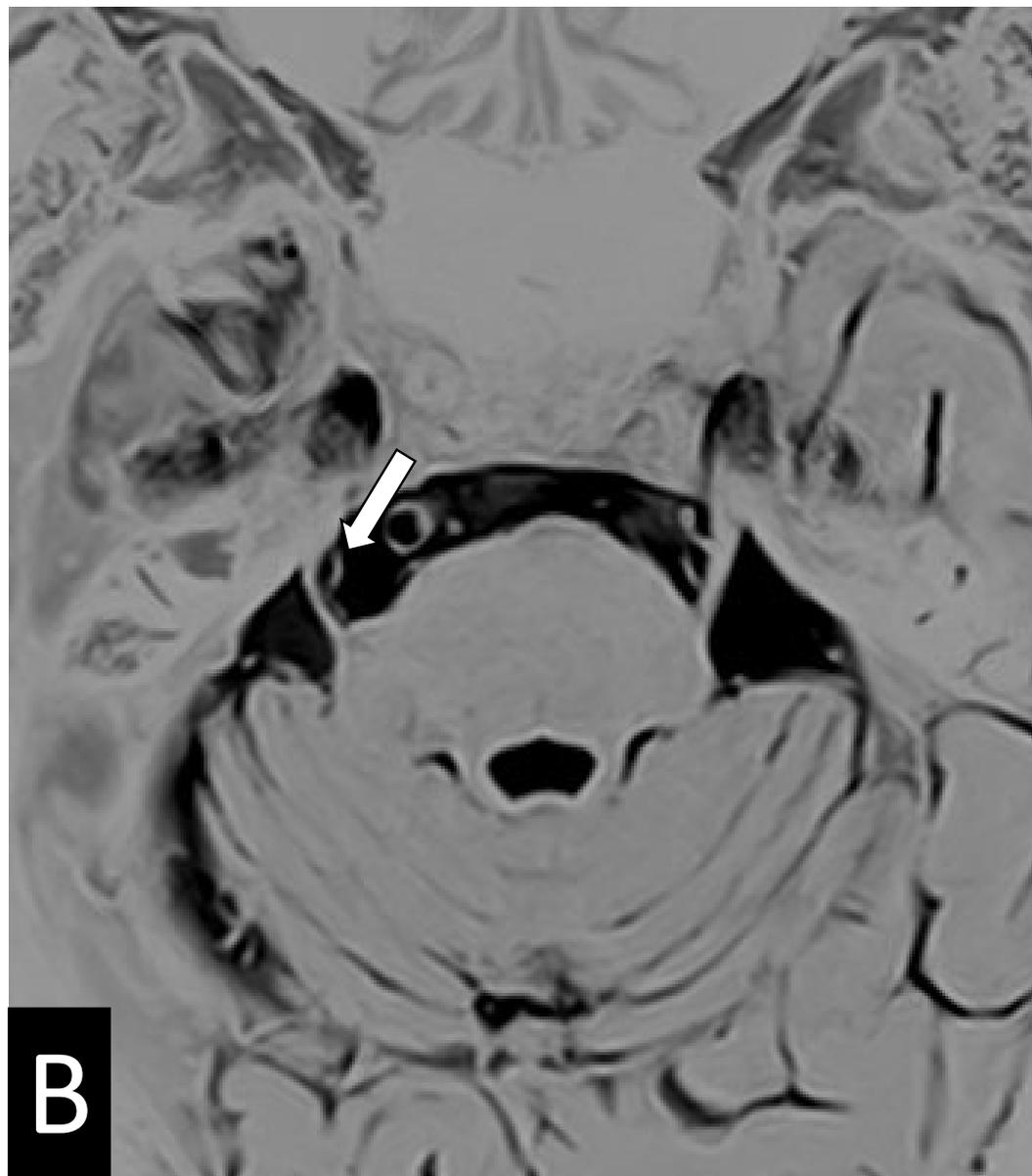
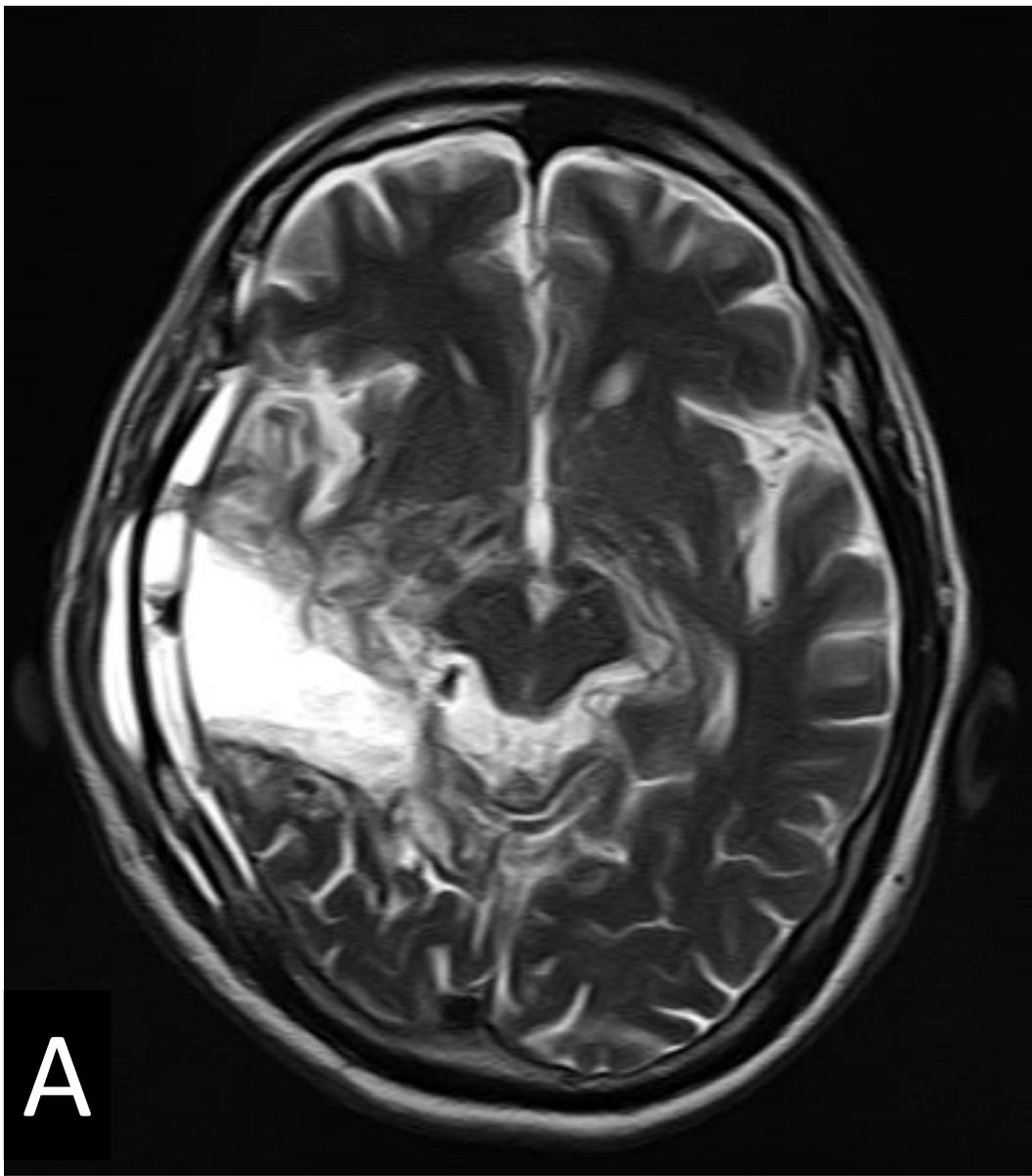


Figure 5