

症例報告

手術により完治した，未破裂脳動脈瘤を合併する
Painful Tic Convulsif の一例

岩佐 英明* 森 茂夫 篠田 宗次

1920年に，初めて Cushing により報告された，片側顔面痙攣に三叉神経痛を合併する症例は，それ以降，“Painful tic convulsif”と呼ばれる様になった。現在までに私共が渉猟し得た範囲では，Painful tic convulsif は合計65例であった。その内，原因の明らかな40例の内訳は，血管性病変31例（脳動静脈奇形2例を含む），腫瘍性病変9例で血管性病変が多かった。しかし，今回，私共の発表した未破裂脳動脈瘤を合併する Painful tic convulsif の報告は，私共が渉猟した範囲では，皆無であった。

更に，術前脳血管撮影を行った，私共の顔面痙攣56症例では未破裂脳動脈瘤の合併が2例（合併率3.6%）という高率にみとめられた。顔面痙攣の術前には，少なくとも，合併症の少ない3D-CTA や MRA などによる未破裂脳動脈瘤の検索をしておくべきであると思われた。

(Key words : tic convulsif, hemifacial spasm, trigeminal neuralgia, unruptured cerebral aneurysm)

はじめに

片側顔面痙攣 (Hemifacial spasm) は，一側の顔面神経支配筋に同期して発作性および間代性の不随意筋収縮がみられる疾患である。1917年，Cushing が聴神経腫瘍30例の報告を行った内の4例にて顔面筋の痙攣がみとめられた記載がその最初の報告であり，更に，1920年，“Hemifacial spasm with tic douloureux”の3例を報告¹⁾し，これ以降，三叉神経痛を合併する顔面痙攣の症例を Painful tic convulsif (Tic convulsif) と呼称される様になった。1962年，Gardner²⁾が顔面痙攣患者の後頭蓋窩開頭術の観察から，脳血管などによる顔面神経の REZ (Root entry zone) での圧排が本症の原因であり，手術による治療が可能であることを報告した。一方，Jannetta ら³⁾は多くの片側顔面痙攣の患者で手術用顕微鏡を使用した微少血管減圧術 (Microvascular decompression : MVD) を行い，かなりの高率で片側顔面痙攣を完治させることに成功した。顔面痙攣の根治療法として確立された「Jannetta の手術」は，今日では本邦

でも多くの施設で行われている。

術前の脳血管撮影に関しては，行う施設と行わない施設があるが，一般には，術前の脳血管撮影時に血管撮影による種々の合併症を来す可能性があることから行わない施設も多い。私共は，2001年以前には，術前の脳血管撮影は，出来るだけ行うことにしていた。その第一の理由は，脳動脈瘤や脳腫瘍や脳動静脈奇形などの病変を術前に診断が可能であり，第二には，未破裂脳動脈瘤と診断された場合は，くも膜下出血の発生を Painful tic convulsif の手術前に予防することが可能であり，更に MVD の術前に責任血管の大略の位置，サイズ，方向などの同定が可能であるので MVD の手術時に大いに参考となる。最近，特に発達が著しい MRI の画像診断法を駆使すれば，術前にかんまり的確に責任血管を同定することが脳血管撮影を施行しなくても可能であると思われる。従って，私共は，最近は従来の脳血管撮影時にみられた様な合併症が殆ど発症しないと考えられる「3D-CTA」や「MRA」を，術前の脳血管撮影の代用として

いる。

今回の私共の報告は Painful tic convulsif に MVD を行い完治せしめた一症例の報告である、と同時に、Painful tic convulsif に未破裂脳動脈瘤の合併がみとめられた非常に珍しい一例であったので文献的考察を含めて報告する。更に、私たちが術前に脳血管撮影を行った片側顔面痙攣の全ての患者においては、実に3.6%の高率で未破裂脳動脈瘤の合併がみられたことについても考察を加えた。

症 例

71才 女性 55.4kg 154.2cm

<主訴>左片側の顔面痛および顔面痙攣

<現病歴>

6年前より左歯肉部痛があったが、痛みの頻度は年間に数回起こる位であったため放置していた。同じ頃に、左側眼瞼周囲の筋肉のびくつきが時々みとめられていた。2000年6月頃に左歯肉部、左口腔粘膜、左側の舌、左下顎部に時々電撃痛ともいえる痛みが生じた。程度・頻度ともに徐々に増強してきていた。近医より三又神経痛と診断されテグレトールの投与を受け、その薬剤により鎮痛効果はみとめられていたが、服薬後動揺感がみとめられ徐々に悪化してきたこと及び顔面痙攣の頻度が増加してきたために、当科を紹介され手術治療を目的として入院となった。また、患者は、既に、2001年6月の時点で、近医を受診しMRIおよびMRA検査にて未破裂の左中大脳動脈動脈瘤の存在を他の脳神経外科施設において指摘されていた。しかし、今日までに一度も、くも膜下出血を思わせる激しい頭痛発作の既往はなかった。

<既往歴>

1954年 肺結核 内科的療法にて治癒。

1995年 白内障 手術にて改善。

1998年 乳ガン 外科的摘除にて現在までに再発はみとめられていない。

<家族歴>

弟は胃癌と大腸癌にて手術。

<入院時神経学的所見>

左三又神経痛が主訴であり、痛みは主として左側三又神経第三枝領域にみとめられ、同側の片側顔面痙攣を時々みとめる。痙攣は時には左口角にまで及ぶことがある。他の脳神経症状や

運動麻痺、知覚麻痺、反射異常、膀胱直腸障害、言語障害、歩行障害などはみとめられなかった。

<血液生化学検査>

特記すべき異常はみとめず

<放射線学的検査>

MRI：左椎骨動脈の左側橋部への圧排による橋部の変形所見をみとめる (Fig. 1)。

脳血管撮影：左内頸動脈撮影の前後像にて、左未破裂中大脳動脈三又部動脈瘤 (最大径は約5mm) をみとめる (Fig. 2)。

<手術所見>

① 左中大脳動脈動脈瘤

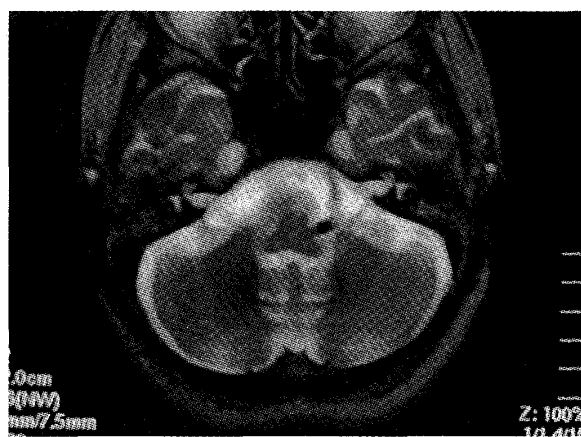


図1 MRI (T2WT)：左椎骨動脈の左側橋部の圧排による橋の変形所見をみとめる。

Fig. 1 MRI, T2WT : Left side of the pons was severely compressed and distorted by a left sclerotic vertebral artery, which was responsible to tic convulsif.



図2 脳血管撮影：未破裂左中大脳動脈三又部動脈瘤 (動脈瘤の最大径は約5mm)

Fig. 2 Left carotid angiography (A-P view) : a berry-type aneurysm was shown on the trifurcation of the left middle cerebral artery.



図3 未破裂左中大脳動脈三又部動脈瘤クリッピング術

Fig. 3 An operative view of aneurysm surgery: A left middle cerebral artery (MCA) aneurysm during operation was shown. Two arrows show the neck of the aneurysm.

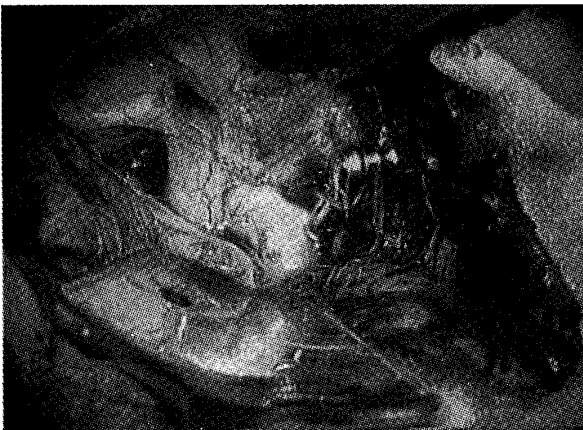


図4 未破裂左中大脳動脈三又部動脈瘤クリッピング術

Fig. 4 The neck of the left MCA aneurysm was clipped by two Sugita's clips.

左前頭側頭開頭術およびクリッピング術。

やや大型の動脈瘤で broad neck であるため 2 本の杉田クリップにて動脈瘤頸部を閉鎖した (Fig. 3, 4)。

② 三又神経および顔面神経の双方に対する微少血管減圧術 (Jannetta's operation)

かなり強い動脈硬化性変化のみとめられる椎骨動脈が、橋中央部、下部および橋延髄移行部を圧排。これが丁度、左側三又神経および顔面神経の Root entry zone (REZ) に一致すると思われ、同部位を Teflon felt により減圧した (Fig. 5, 6)。

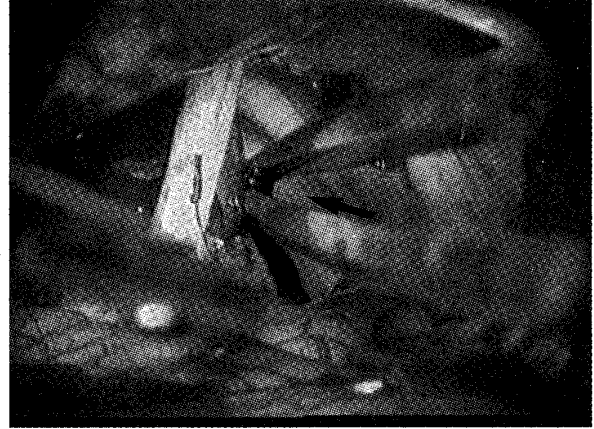


図5 微少血管減圧術

Fig. 5 An operative view of the microvascular decompression: The left trigeminal nerve was distorted and flattened by a left thick and sclerotic vertebral artery (displaced by forceps) on about the region of the root entry zone (REZ) of the trigeminal nerve. An arrow shows the flattened trigeminal nerve. The left seventh cranial nerve was also compressed by the artery on about the region of REZ of the seventh from ventral side.

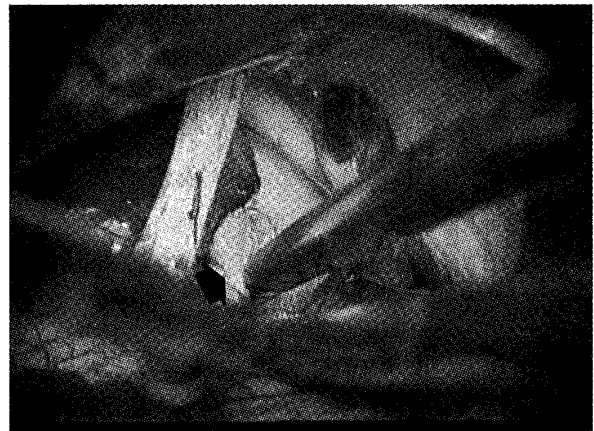


図6 微少血管減圧術

Fig. 6 A vascular decompression surgery to the left facial and trigeminal nerve was being done by some bundles of small Teflon felt.

考 察

顔面痙攣は、一側の顔面神経支配筋群に同期して、発作性および間代性の不随意性筋収縮がみとめられる疾患である。1917年、Cushing が聴神経腫瘍30例の報告を行ったが、その内の4例にて顔面筋の痙攣がみとめられた記載があり、これが片側顔面痙攣の最初の報告であった。更に、1920年、“Hemifacial spasm with tic doulour-

eux”の3例を報告¹⁾し、これ以降、三叉神経痛を合併する顔面痙攣の症例は、Painful tic convulsif (Tic convulsif) と呼称される様になった。1962年、Gardner²⁾が顔面痙攣患者の後頭蓋窩開頭術での観察から、顔面神経の REZ (Root exit zone) での脳血管などによる圧迫が本症の原因であり、手術による治療が可能であることを報告した。Jannetta ら³⁾は、多くの顔面痙攣の患者で微少血管減圧術 (Microvascular decompression: MVD) による治療を行ってかなり良い成績をおさめている。一方、本邦に於いては、近藤⁴⁾および福島ら⁵⁾、によって、本手術が始められた。

Cook ら⁶⁾は、彼らが経験した Tic convulsif の11例中10例において、血管による顔面神経の圧迫がその原因であったと述べている。1993年に大城ら⁷⁾は、総計59例の Painful tic convulsif の発表があった事を報告している。その後、1995年に篠田ら⁸⁾の Epidermoid による Painful tic convulsif の1例と2000年に草鹿ら⁹⁾の自験例を加えて、それまでに合計64例の報告がある。今回の私共の1例を加えると、現在までに報告された Tic convulsif の論文は、総計65例に及ぶ。その内、原因の明らかな40例の内訳は、血管性病変31例(脳動静脈奇形2例を含む)、腫瘍性病変9例で血管性病変が多かった。また、Grygor-yan ら¹⁰⁾による、対側の椎骨動脈が張り出して来て、こちら側の Painful tic convulsif を発症した希有な一症例の報告もある。

私共は、本症例に至るまで術前検査として出来るだけ脳血管撮影を行ってきたが、脳血管撮影を行った合計56例中、実に2例(本症例を含めて)に於いて未破裂脳動脈瘤が発見された。現在までにその2例とも、開頭によるクリッピング術を行い脳動脈瘤を確認し、かつ、術後に何らの神経学的欠損症状もみていない。また、MVDの手術待機中に、くも膜下出血の偶発症の経験もない。56中2例、つまり3.6%という高率で、未破裂脳動脈瘤の合併が認められたことは、ある疾患に対して脳動脈瘤が合併する頻度としては、例えば、全下垂体腺腫例の3.7~7.4%に脳動脈瘤の合併がみとめられた事実¹¹⁾に比べればやや僅少であるが、くも膜下出血という危険性の高い疾患の合併ということを考慮すれ

ば、従来の脳血管撮影は行わなくても、合併症の殆どみとめられない3D-CTA や MRA にて、術前に脳動脈瘤の合併の有無を確認しておき、必要な場合には微少血管減圧術を施行する前に、動脈瘤のクリッピング術を施行しておくべきであると考ええる。ちなみに、今回私共が報告した「未破裂左中大脳動脈動脈瘤を合併する Tic convulsif」の一症例の手術は、二期的に行なわれた。まず、未破裂脳動脈瘤のクリッピングを行い、その約1ヶ月後に、左側の微少血管減圧術を行った。また、現在まで私共が渉猟し得た範囲では、片側顔面痙攣に未破裂脳動脈瘤の合併がみられたという報告はみとめられなかった。

私共は、三叉神経痛の同時合併はみとめられなかったものの、単に、顔面痙攣に未破裂脳動脈瘤を合併した症例を、今回の報告例以外にも経験している。その症例は、57才の女性で、入院5~6年前から右側の顔面痙攣の発症がみとめられて、手術治療を希望して当科に入院した。術前の脳血管撮影にて前交通動脈瘤がみとめられ、微少血管減圧術を施行する前に、クリッピング術を施行した症例である。

結 語

- 1 Painful tic convulsif と呼ばれる同側の顔面痙攣および三叉神経痛の病態に更に未破裂脳動脈瘤を合併した極めて希な症例で、二期的なクリッピングおよび微少血管減圧の手術により、根治せしめ得た一症例を報告した。
- 2 私共は片側顔面痙攣に未破裂脳動脈瘤を合併した他の1例の経験もあり、今回の報告例を含めて、当施設で脳血管撮影が行われた顔面痙攣56例中、未破裂脳動脈瘤2例(合併率: $2/56=3.6\%$)の合併を経験した。片側顔面痙攣全例に於いて、術前に3D-CTA あるいは MRA を行えば、未破裂脳動脈瘤の合併が更に多くの症例でみとめられる可能性のあることが示唆された。

文 献

- 1) Cushing H: The major trigeminal neuralgia and their surgical treatment based on experiences with 332 gasserian operations: First

- paper. The varieties of facial neuralgia. Am J Med Sci 160 : 157-184, 1920
- 2) Gardner WJ, Sava GA : "Hemifacial spasm : a reversible pathophysiologic state. ". J Neurosurg 19 : 240-247, 1962
 - 3) Jannetta PJ, Abbasay M, Maroon JC, Ramos FM, Albin MS : Etiology and definitive microsurgical treatment of hemifacial spasm : operative technique and results of 47 patients. ". J Neurosurg 47 : 321-328, 1977
 - 4) 近藤明恵, 石川純一郎, 樋渡章二, 山崎俊樹, 小山素麿 : 「顔面痙攣, 耳鳴症, 三叉神経痛に対する microvascular decompression による治療経験.」. 脳外 7 : 677-685, 1979
 - 5) 福島孝徳 : 「顔面痙攣, 三叉神経痛に対する後頭蓋窩神経血管減圧術 (Jannetta 法)」。脳外 10 : 1257-1261, 1982
 - 6) Cook BR, Jannetta PJ : Tic convulsif : Results in 11 cases treated with microvascular decompression of the fifth and seventh cranial nerves. J Neurosurg 61 : 949-951, 1984
 - 7) 大城真也, 井上 亮, 浜田康宏, 松野治雄 : 「顔面痙攣に三叉神経痛を合併した 1 例」。JPN MRI, J Neurosurg (Tokyo) 2 : 51-56, 1993
 - 8) 篠田宗次, 草間 律, 長 弘之, 森 茂夫, 増澤紀男 : 「Painful tic convulsif を呈した epidermoid の一例」。脳外 23(7) : 599-602, 1995
 - 9) 草鹿 元, 小黒恵司, 森 茂夫, 篠田宗次, 増沢紀男 : 「Painful tic convulsif—2 症例の経験と文献的考察—」。自治医大紀要 23 : 187-193, 2000
 - 10) Yuri A. Grygoryan, MD, Oleg N. Dreval, MD, and Sussanna I. Michailova, MD : "Painful Tic Convulsif Caused by a Contralateral Vertebral Artery". Surg Neurol 35 : 471-4, 1991
 - 11) 中川原讓二, 末松克美, 中村順一・他 : 「Carotid -ophthalmic aneurysm を伴う Pituitary apoplexy の 1 例」。脳神経外科 13 : 307-311, 1985

A successful two-staged operation on a painful tic convulsif associated with an unruptured cerebral aneurysm

Hideaki Iwasa, MD, Shigeo Mori and Souji Shinoda, MD

Abstract

A 71-year-old female with a painful tic convulsif, associated with an unruptured left middle cerebral artery berry-type aneurysm, first, had a surgery of clipping of the left MCA aneurysm, and second, had microvascular decompression surgery for relieving the left side trigeminal neuralgia and hemifacial spasm (tic convulsif). Both surgeries were successful.

In 1920, Cushing first described three cases of tic convulsif including painful tic convulsif. There were 64 reported cases of tic convulsif before this report, but there had been no report of tic convulsif associated with an unruptured cerebral aneurysm as in our case.

In addition, we had another case of hemifacial spasm with unruptured anterior communicating artery aneurysm. So far, we have experienced 5 cases of hemifacial spasm on which have performed a cerebral angiogram. The association rate of hemifacial spasm and unruptured aneurysms was 3.2% (2/56). In the hemifacial spasm cases, we had better to do preoperative angiographical examination using MRA or 3D-CTA to look for hidden cerebral aneurysms instead of a cerebral angiogram with which we sometimes had some advertent complications.

(Key words: Tic convulsif, Hemifacial spasm, Trigeminal neuralgia, Unruptured cerebral aneurysm)