投稿論文
Case Report

〈脳神経外科速報　vol.33 no.1　e20233301b, 2023〉

Dolichoectatic vertebral artery による三叉神経痛に対する神経血管減圧術後に合併した遅発性水頭症の１症例

塩崎絵理[1)]，**川原一郎**[1)]

1) 国立病院機構長崎医療センター脳神経外科　〒856-8562 長崎県大村市久原 2-1001-1

Key Slide

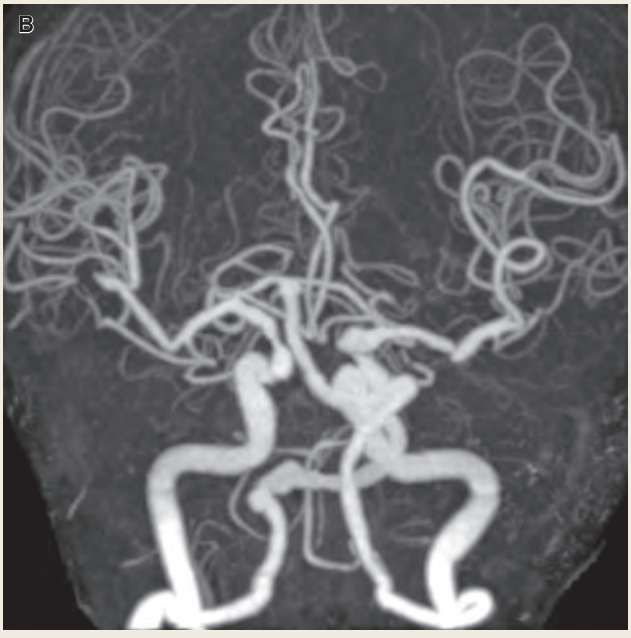

Fig.1

B：Magnetic Resonance images（MRI）. MR angiography（MRA）showing tortuous, dilated and elongated bilateral VA（B）.

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

Delayed hydrocephalus following microvascular decompression for trigeminal neuralgia due to dolichoectatic vertebral artery

Eri SHIOZAKI [1)], Ichiro KAWAHARA [1)]

1) Department of Neurosurgery, National Hospital Organization Nagasaki Medical Center

A 79-year-old woman had suffered from 5-year history of severe left trigeminal neuralgia. MRI revealed mechanical compression of the trigeminal nerve due to a dolichoectatic vertebral artery on the left. Microvascular decompression (MVD) was performed. The paroxysmal facial pain disappeared immediately after the surgery, and the patient was discharged early with an uneventful postoperative course. However, the patient gradually presented gait disturbance, disorientation, and urinary incontinence, about one month after the hospital discharge. The patient underwent a ventricular peritoneal shunt because of communicating hydrocephalus, and the symptoms improved. Additional 4 months of follow-up was conducted, but no exacerbation of the symptoms associated with hydrocephalus was observed.

MVD is an established surgical treatment of trigeminal neuralgia and is considered relatively less invasive than other surgeries in the posterior fossa. Major complications include cerebrospinal fluid leakage, infection, cranial nerve injury, infarction, and hemorrhage; but hydrocephalus, in particular delayed hydrocephalus, has been reported infrequently.

One may speculate that the participation of some type of inflammatory reaction is a probable cause for the development of delayed communicating hydrocephalus. Moreover, it may be that most case series focusing on MVD are restricted to short-term complications. Although delayed hydrocephalus following MVD is rare, we should be vigilant for this condition and careful long-term follow-up is recommended.

Key Words : **microvascular decompression, communicating hydrocephalus, trigeminal neuralgia, dolichoectatic vertebral artery**

(Received May 23, 2022; Accepted June 7, 2022)

Correspondence to Ichiro KAWAHARA, M.D.,
Department of Neurosurgery, National Hospital Organization Nagasaki Medical Center, 2-1001-1 Kubara Omura-shi, Nagasaki, 856-8562, Japan
E-mail: kawahara.ichiro.kr [at] mail.hosp.go.jp

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

I. 緒　言

三叉神経痛は，発作性の“針で刺すような”顔面疼痛を特徴的主症状とし，日常生活に影響を及ぼす代表的な神経圧迫症候群の１つであり[1-3]，治療方法としては，薬物療法，神経ブロック療法，ガンマナイフ治療，そして神経血管減圧術（microvascular decompression：MVD）があり，MVD は唯一の確立した根治手術として評価されている[1, 3-5]．MVD 手術に関しては，1970 年代に Peter J. Jannetta[2] が手術顕微鏡を用いた手術法へと発展させ，神経に外傷を与えることなく圧迫血管の減圧を行い，治癒させる画期的な治療法を確立し，“serendipitous microsurgical observation”と称された．

いわば，かつては本態性疾患であったものが器質的疾患へと変化し，今日においては，片側顔面けいれんや舌咽神経痛などと同様に神経血管圧迫症候群の１つとして MVD による治療が定着し，良好な治療効果が得られている[1, 3, 4]．三叉神経痛の治療方法の中で，三叉神経から原因となっている圧迫した責任血管を切り離す MVD は最も理に適っており，効果的かつ根治的な確立した治療法である．

また，MVD は他の後頭蓋窩手術と比べ，比較的侵襲性が低い手術としても位置付けられており，主な手術合併症としては，動静脈損傷に伴う脳出血，脳梗塞，脳腫脹，脳挫傷，髄液漏，感染，脳神経障害などが挙げられ[1, 3, 6]，水頭症に対しても報告例はあるがその発生頻度は低く[1, 3]，脳出血，脳梗塞および脳浮腫などに合併した急性あるいは亜急性期の閉塞性水頭症がほとんどである[1]．今回我々は dolichoectatic vertebral artery による三叉神経痛に対して MVD を行い，術後遅発性に交通性水頭症を呈した１例を経験したため文献的考察を加えて報告する．

II. 症　例

患　者：79 歳女性．

主　訴：左顔面の刺すような痛み．

既往歴：高血圧症，狭心症に対して降圧薬およびアスピリンを内服中．

現病歴：5 年前より左三叉神経痛に対してカルバマゼピンを開始された．最大量の 1,200 mg まで増量し三叉神経ブロックも施行されたが効果は乏しく，徐々に治療抵抗性となり，食事摂取も困難な状況となったため手術目的に当科紹介となった．

入院時現症：左鼻唇溝に trigger point を有する左三叉神経第１，２領域の発作性疼痛があり，咀嚼時に疼痛が誘発された．顔面神経麻痺や耳鳴などの他の脳神経症状は認めなかった．

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

画像所見：Computed tomography（CT）では蛇行し左側に偏位した左椎骨動脈（vertebral artery：VA）が三叉神経近傍を走行しており一部石灰化も確認された**（Fig. 1A）**．Magnetic resonance image（MRI）では左右の VA から脳底動脈（basilar artery：BA）にかけて延長・拡張し強く蛇行した dolichoectasia を認め**（Fig. 1B）**，左 VA は三叉神経を圧迫していた**（Fig. 1C，D）**．

手術所見：右下側臥位，左後頭下開頭による MVD を施行した．著明な動脈硬化性変化を呈し屈曲蛇行した左 VA により三叉神経は強く圧迫され扁平化していた**（Fig. 2A，B）**．VA の動脈硬化が高度であったため圧迫遠位部から徐々に可動性を持たせ，最終的には VA と橋の間にテフロンを挿入し，VA を root entry zone（REZ）および三叉神経から起こすようにして減圧を行った**（Fig. 2C，D）**．

術後経過：術後速やかに三叉神経痛は消失し，感染徴候含め明らかな合併症なく術後 10 日目に自宅退院となった**（Fig. 3C，D）**．退院直後は特に問題なく経過していたが，退院 1 カ月ごろより徐々に歩行障害，失禁，記銘力低下を自覚するようになり，外来を受診した際には開頭部の著明な皮下水腫を認めた．髄液検査（無色透明，圧 120 mmH_2O，細胞数 10/3，蛋白 40 mg/dL，糖 45 mg/dL）にて髄膜炎は否定された．頭部 CT で交通性水頭症の診断に至り**（Fig. 3E，F）**，脳室腹腔シャント術を施行した．術後早期に上記症状は改善，皮下水腫も縮小し**（Fig. 3G，H）**，さらに 4 カ月間の経過観察を行ったが水頭症に伴う諸症状の再燃は見られていない．

III. 考　察

頭蓋内動脈の dolichoectasia とは，伸展（elongation），蛇行（tortuosity），拡張（ectasia）を特徴とする病態であり，動脈瘤破裂，脳幹や脳神経の圧迫および脳梗塞などをきたしたときに治療に難渋する[7-9]．一般的に三叉神経痛の責任血管としては，上小脳動脈（superior cerebellar artery：SCA），前下小脳動脈（anterior inferior cerebellar artery：AICA）が大部分を占め，dolichoectatic VA，BA が責任血管となるのは 2 ～ 7.7％と比較的少ない[9-11]．過去の報告でも，552 例の MVD 症例のうち dolichoectatic vertebrobasilar artery による圧迫は 13 例（2.4％）で，そのうち dolichoectatic VA のみが圧迫血管であったのはわずか 1 例であったと述べており[8]，自験例のような症例は比較的少ないと言える．手術方法に関しても，高度の動脈硬化性変化を呈するため減圧に難渋する場合も多く手術難度は高くなるものの[7, 8, 10]，圧迫箇所のみならず遠位部も含めて可及的に可動性を持たせ減圧することで治療効果は十分期待できるものと考える．自験例においても同様な減圧操作を行い良好な結果が得られた．

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

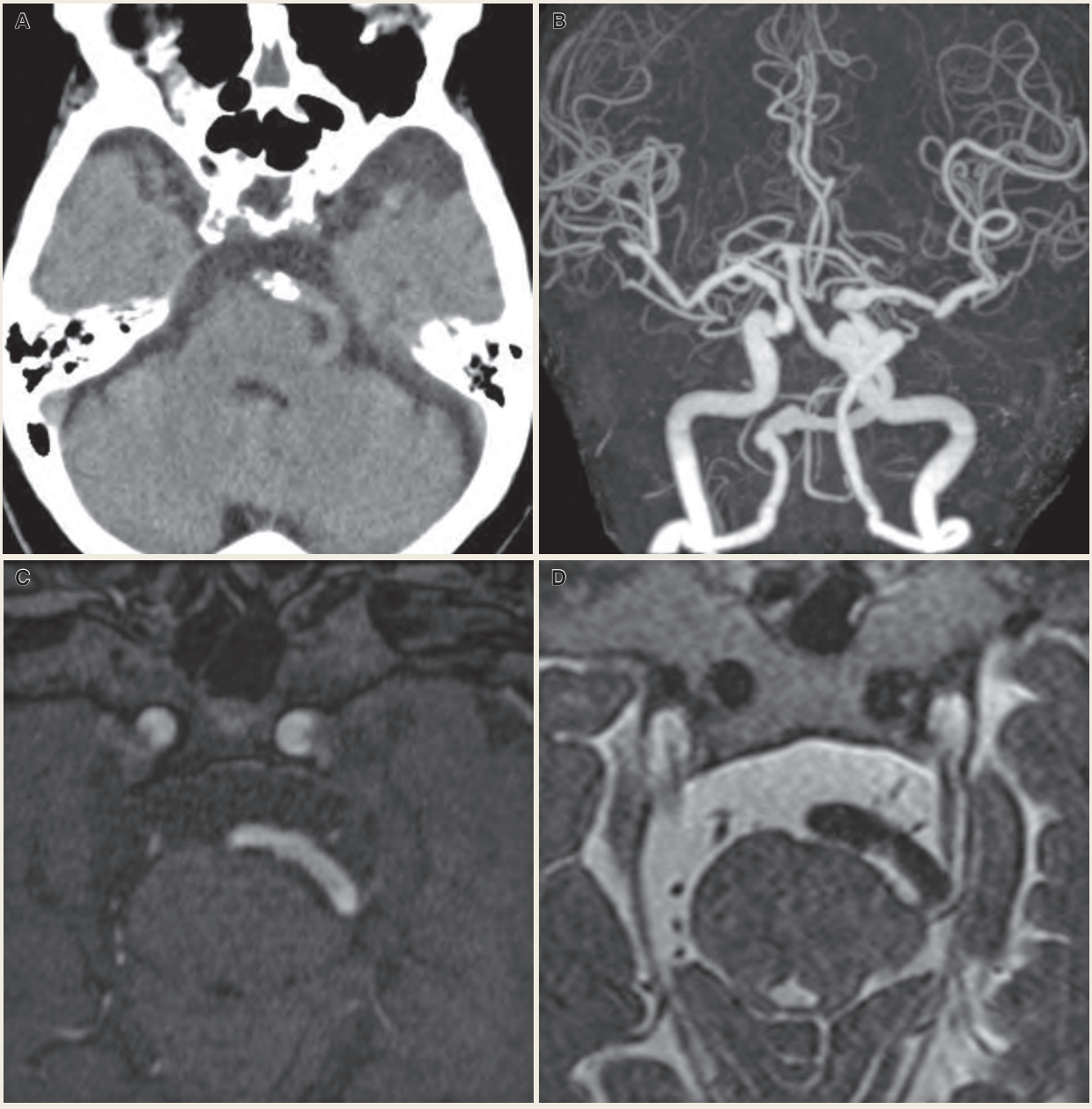

Fig.1

A：Computed tomography showing tortuous and calcified vertebral artery（VA）on the left side.

B-D：Magnetic Resonance images（MRI）. MR angiography（MRA）showing tortuous, dilated and elongated bilateral VA（B）. The source image of MRA（C）and T2 weighted image（D）showing the left dolichoectatic VA compressing the root entry zone of trigeminal nerve.

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

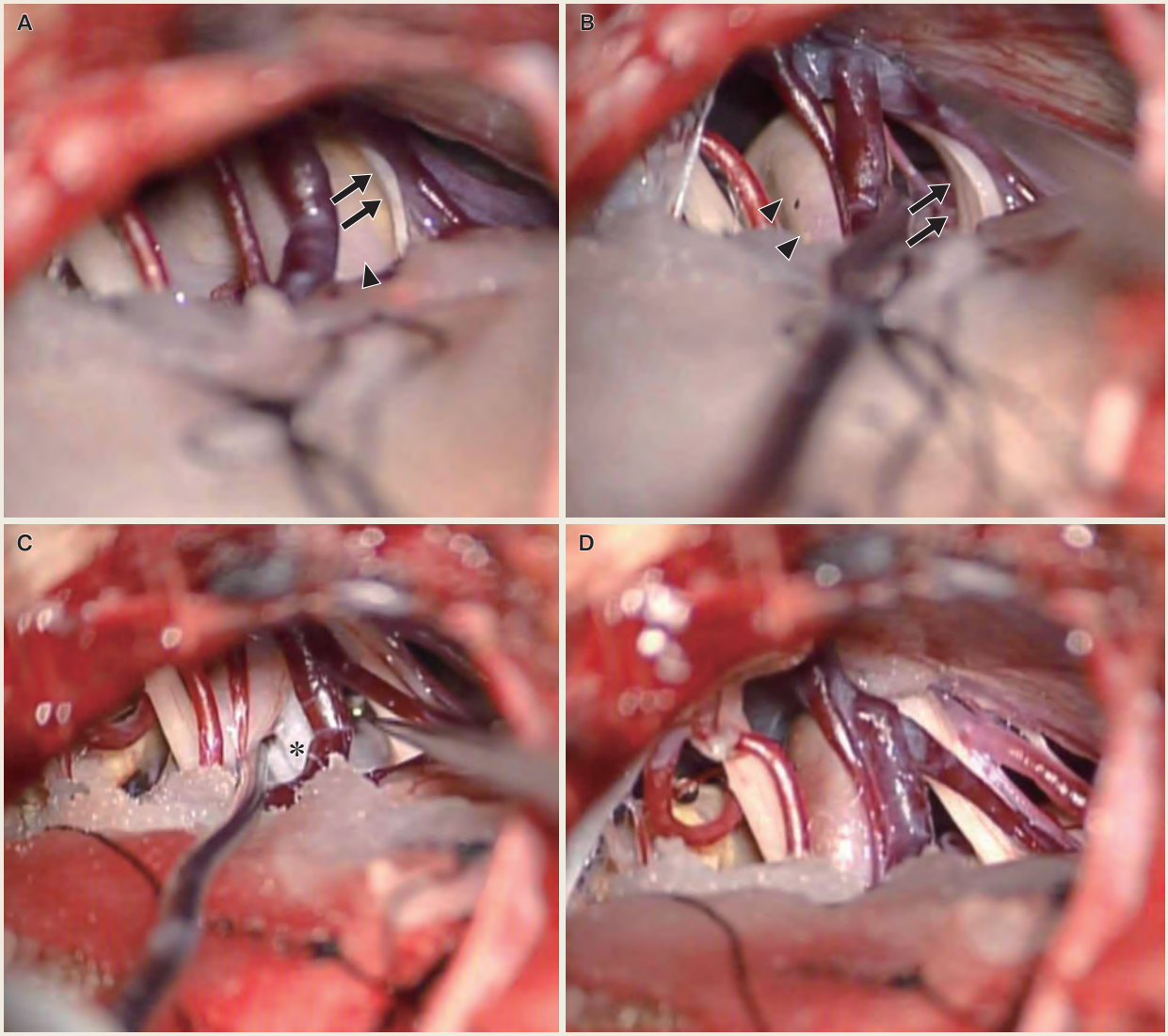

Fig.2

Intraoperative photographs.
A：Dolichoectatic VA（arrow head）strongly compressing the trigeminal nerve（arrows）.
B：Trigeminal nerve is flattened due to compression by dolichoectatic VA.
C：Teflon felt（asterisk）is inserted between dolichoectatic VA and trigeminal nerve.
D：The compression by dolichoectatic VA is released.

一般的な後頭蓋窩手術に伴う続発性の水頭症の頻度は平均 4.6％と報告されており[12, 13]，原因としては，血腫のくも膜下腔への拡散，過度の牽引に伴う小脳出血や腫脹，小脳・脳幹梗塞，感染などが考えられている[5, 12-14]．さらにテント上の手術と比較した場合，後頭蓋窩手術の場合は急性期や亜急性期に閉塞性水頭症へと発展する場合が多いようである[12, 13]．MVD も後頭蓋窩手術ではあるものの，脳腫

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

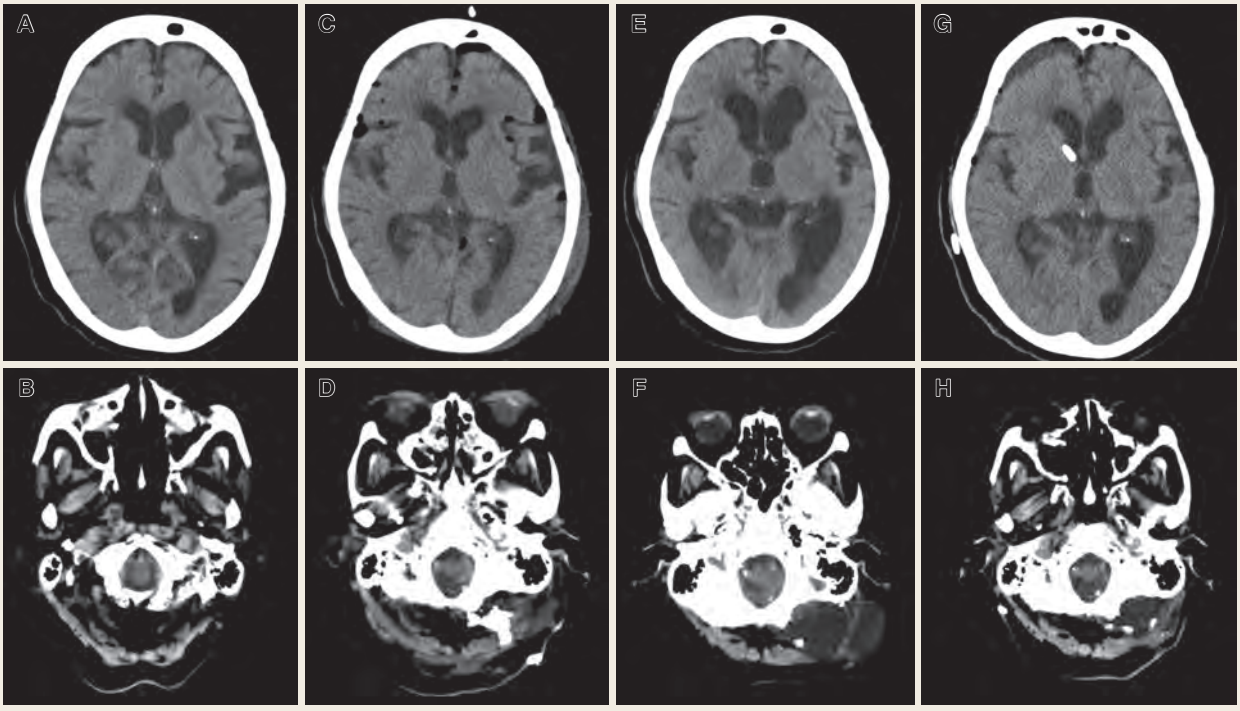

Fig.3

A, B：Preoperative CT.
C, D：Postoperative CT.
E, F：CT at one month after surgery showing ventricular enlargement and subcutaneous fluid collection.
G, H：Ventricular peritoneal shunt has improved hydrocephalus and subcutaneous fluid collection.

瘍や血管障害の手術症例と比べ機能的手術という特質上，脳組織に及ぼす影響は少なく，一般的には他の後頭蓋窩手術と比べ侵襲性は低いと位置付けられている[1, 3]．Barker ら[1]は，1,336 例の MVD 手術症例のうち水頭症をきたしたのはわずか 2 例のみであり，三叉神経痛に対する MVD は安全かつ効果的であると報告している．一方，Muratorio ら[5]は，MVD を施行した 259 例のうち 9 例（3.47％）に交通性水頭症を生じ，発症時期は術後からの平均 95.82 日（10 ～ 183 日）であったと報告している．

発症時期に関しても，上述したように他の後頭蓋窩手術の場合はほとんどが術後急性期～亜急性期であるのに対して，遅発性に発症したものは自験例および Muratorio ら[5]の報告例のみであり，比較的稀である．退院後数カ月の経過で徐々に見当識障害，歩行障害や尿失禁などの症状が顕在化し，術後急性期の閉塞性水頭症とは異なる遅発性の交通性水頭症であるのが本病態の特徴と考える．考え得る発生機序としては，術中に有意な出血や感染徴候などの合併症がなかったとしても，くも膜下腔への微量の血腫の流れ込み，減圧に使用した prosthesis や cellulose な

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

ど止血剤の影響，血管周囲の剥離操作などを契機として，あるいは dolichoectatic VA 自体の血管壁に生じる慢性的な炎症性変化に伴う炎症性物質によって脳軟膜の線維化が生じ，結果的に脳脊髄液の排出障害が引き起こされた可能性が示唆されるがさらなる知見を要する[5]．

また，MVD 手術においては，その効果および術直後の合併症の有無を主体に評価する傾向があり，退院後の緩徐な水頭症症状の出現に関しては患者含め認知度が低い点も pitfall であるかもしれない．自験例のような高齢患者であれば年齢によるものと判断されてしまう可能性も考えられる．特発性正常圧水頭症の発生率が 0.14 ～ 2.94％である[15] ことを考えると，Muratorio ら[5] が報告した 3.47％という値は決して無視できない頻度であり，MVD 術後のフォローアップは今まで以上に長期間必要であり，重要な遅発性合併症の 1 つとして十分に留意すべきである．

IV. 結　語

三叉神経痛に対する MVD は有効かつ比較的侵襲性が低い確立した治療法であり，術後の症状改善や早期の合併症が重視される傾向があるが，遅発性に交通性水頭症を生じることもあり重要な合併症の 1 つとして十分留意すべきである．

文献

1) Barker FG 2nd, et al: The long-term outcome of microvascular decompression for trigeminal neuralgia. N Engl J Med 334: 1077-83, 1996
2) Jannetta PJ: Treatment of trigeminal neuralgia by suboccipital and transtentorial cranial operations. Clin Neurosurg 24: 538-49, 1977
3) Xia L, et al: Effectiveness and safety of microvascular decompression surgery for treatment of trigeminal neuralgia: a systematic review. J Craniofac Surg 25: 1413-7, 2014
4) Kaufmann AM, Price AV: A history of the Jannetta procedure. J Neurosurg 132: 639-46, 2019
5) Muratorio F, et al: Hydrocephalus: an underrated long-term complication of microvascular decompression for trigeminal neuralgia. A single institute experience. Acta Neurochir (Wien) 158: 2203-6, 2016
6) Hanakita J, Kondo A: Serious complications of microvascular decompression operations for trigeminal neuralgia and hemifacial spasm. Neurosurgery 22: 348-52, 1988
7) Sun S, et al: Clinical analysis and surgical treatment of trigeminal neuralgia caused by vertebrobasilar dolichoectasia: A retrospective study. Int J Surg 41: 183-9, 2017
8) Honey CM, Kaufmann AM: Trigeminal Neuralgia due to Vertebrobasilar Artery Compression. World Neurosurg 118: e155-60, 2018
9) Campos WK, et al: Trigeminal Neuralgia due to Vertebrobasilar Dolichoectasia. Case Rep Neurol Med: 367304, 2012
10) Apra C, et al: Microvascular decompression is an effective therapy for trigeminal neuralgia due to dolichoectatic basilar artery compression: case reports and literature review. Neurosurg Rev 40: 577-82, 2017
11) Linskey ME, et al: Microvascular decompression for trigeminal neuralgia caused by vertebrobasilar compression. J Neurosurg 81: 1-9, 1994
12) Dubey A, et al: Complications of posterior cranial fossa surgery--an institutional experience of 500 patients. Surg Neurol 72: 369-75, 2009
13) Legnani FG, et al: Craniotomy vs. craniectomy for posterior fossa tumors: a prospective study to evaluate complications after surgery. Acta Neurochir (Wien) 155: 2281-6, 2013
14) Kosteljanetz M: CSF dynamics in patients with subarachnoid and/or intraventricular hemorrhage. J Neurosurg 60: 940-6, 1984
15) Conn HO: Normal pressure hydrocephalus (NPH): more about NPH by a physician who is the patient. Clin Med (Lond) 11: 162-5, 2011

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.