

環椎後頭関節の再建に配慮した 舌下神経鞘腫の手術

森崎雄大^{1, 2)}, 河野道宏¹⁾, 松島 健¹⁾

1) 東京医科大学脳神経外科 〒160-0023 東京都新宿区西新宿 6-7-1

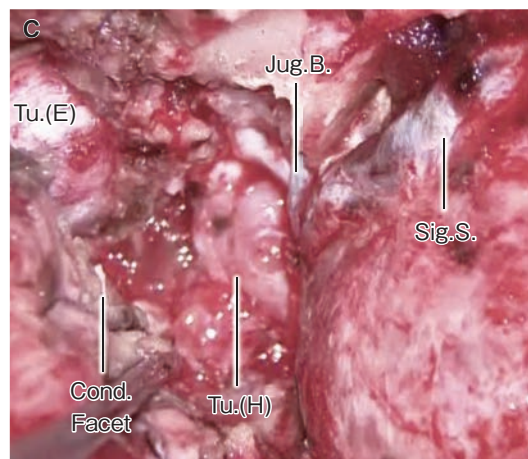
2) 奈良県立医科大学脳神経外科

舌 下神経鞘腫は稀な腫瘍であり、しばしば舌下神経管・後頭顆を破壊しつつ頭蓋内外に進展する。安全かつ可及的摘出のためには、頭蓋頸椎移行部の解剖学的理解と環椎後頭関節の安定性への考慮が必要となる。今回、環椎後頭関節の安定性と低侵襲な再建を考慮しつつ、transcondylar approachを用いて亜全摘出を行った頭蓋内外に進展するトリプルダンベル型の舌下神経鞘腫を経験したので報告する。環椎後頭関節の安定性を保持するため、後頭顆の皮質骨、特に関節面の温存と、削除部位に対する骨ペースト充填が有効と考えられた。

Key Words

cerebellopontine angle, craniocervical junction, intracranial and extracranial neuroma, skull base surgery, transcondylar approach

Key Slide



(Received May 17, 2024; Accepted September 12, 2024)

I. 緒言

舌下神経鞘腫は稀な腫瘍であり、現在まで約100例の報告がある程度である^{1, 2)}。頭蓋内に局限することもあるが、舌下神経管・後頭顆（occipital condyle）を破壊しつつ頭蓋内外に進展する症例も多い^{3, 4)}。安全かつ可及的摘出のためには、術中神経モニタリングなどとともに、頭蓋頸椎移行部の解剖学的理解と環椎後頭関節の安定性への配慮も必要となる。

今回、環椎後頭関節の安定性と低侵襲な再建を考慮しつつ、亜全摘出を行った頭蓋内外に進展するトリプルダンベル型の舌下神経鞘腫を経験したので報告する。

なお、本報告を作成し投稿することに関して、患者より同意を得た。

II. 症例

患 者：32歳，男性。

主 訴：後頸部痛，呂律不良。

既往歴：特記なし。

現病歴：1カ月ほど前からの後頸部痛，呂律不良にて左頸静脈孔近傍腫瘍を発見され，精査加療目的に当科へ紹介となった。

入院時神経学的所見：意識清明，舌の左方偏位および線維束攣縮を認めた。カーテン徴候や嗄声，胸鎖乳突筋・僧帽筋の萎縮は認められなかった。

検査所見：耳鼻咽喉科による喉頭・嚥下機能評価では異常所見を認めず，電気味覚検査でも大錐体・鼓索・舌咽神経いずれも異常所見を認めなかった。

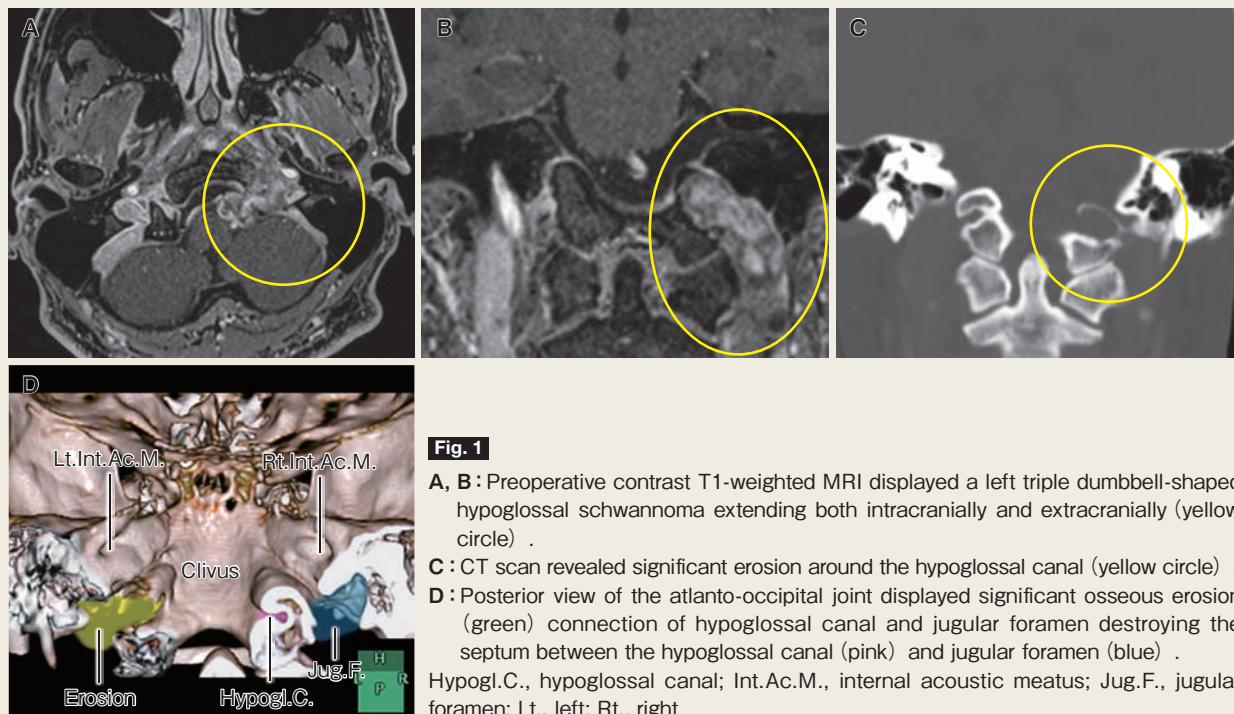
神経放射線学的所見：頭部造影MRIにて左小脳橋角部から舌下神経管内・頭蓋外に造影剤で強

調される腫瘍性病変を認め，舌下神経鞘腫と診断した（Fig. 1A, B）。延髄および椎骨動脈に接し，下位脳神経は頭側へと圧排されていた。また，頭蓋外成分の尾側はC2レベルまで進展していた。術前CTにて，左舌下神経管の拡大と頸静脈孔への連続性を認め，関節面を含めた後頭顆皮質骨はおおむね保たれていたものの，後頭顆の部分的な破壊を認めた（Fig. 1C, D）。

治療方針：若年かつ脳幹に接し，下位脳神経を頭側に圧排する頭蓋内病変を認めており，増大により脳幹圧迫症状または下位脳神経症状を来し得ると判断し，この時点で手術適応とした。Transcondylar approach および high cervical exposure を用いた腫瘍の可及的摘出の方針とした。

手術所見：術前に体性感覚誘発電位（SEP），聴性脳幹反応（ABR），顔面・下位脳・舌下神経モニタリングを設置した。仰臥位にて耳介後方に皮膚切開を設け（Fig. 2A），perifascial areolar tissue（PAT）を主とした有茎胸鎖乳突筋弁を作成した。外側後頭下開頭・大孔開放を行い，後頭顆を露出した（Fig. 2B）。発生源と考えられる舌下神経の再建が可能な場合，もしくは下位脳神経の運動神経を損傷し再建を要する場合に備え，大耳介神経は切断せずに剥離して温存，小後頭神経は剥離して切断し，確保しておいた。顕微鏡を導入し，顆窩（condylar fossa），頸静脈結節（jugular process）に続き，後頭顆を3分の1削除し，舌下神経管および頸静脈孔後壁を開放した³⁾。後頭顆の削除は必要最小限とし，特に関節面の皮質骨は丁寧に温存した（Fig. 2C）。

頭蓋外では，電気刺激にて下位脳神経を同定しつつ，舌下神経管内腫瘍成分から連続した頭蓋外成分を露出した。その後，硬膜を切開し，下位脳



神経腹側に頭蓋内腫瘍成分を確認した (Fig. 2D). 可及的に正常な舌下神経線維を温存しつつ、頭蓋内成分を全摘出した。続いて、舌下神経管内および頭蓋外成分を亜全摘出し、全体で 98% 摘出と判断した。頸静脈球後壁の硬膜はおおむね保たれていた。舌下神経管頭蓋内開口部を筋膜および DuraGen (Integra Japan) にて閉鎖した (Fig. 2E)。骨構造の補強のため、腫瘍摘出腔および後頭顆削除部位は、温存した皮質骨を指標にリン酸カルシウム骨ペーストを用いて充填した (Fig. 2F)。後頭蓋窩硬膜は watertight に縫合し、有茎胸鎖乳突筋弁にて硬膜縫合部を補填した。

術後経過：良好な覚醒を確認し、術直後に抜管を行った。術後の造影 MRI では腫瘍は術中所見どおり腫瘍は亜全摘出されていた (Fig. 3A, B)。術後には軽度の一過性嚥下障害・嘔声を認めたも

の、術 1 週間後には常食摂取可能であった。術後合併症なく、左舌下神経麻痺は増悪を認めず、独歩退院となった。術後 2 年の経過観察中に腫瘍の再増大を認めず、CT で環椎後頭関節の不安定を疑う所見も認めなかった (Fig. 3C, D)。

III. 考 察

舌下神経管は、後頭顆のおおむね中央を、大孔内面から前側方へと走行する⁵⁾。そのため、外側後方から観察しても舌下神経管を視認することはできず、舌下神経管を開放するためには後頭顆の削除が必要となる。舌下神経管の外側前方には頸静脈孔が位置し、骨破壊が進行した舌下神経鞘腫の症例では、しばしば舌下神経管と頸静脈孔の連続がみられる (Fig. 1D)。

舌下神経鞘腫の局在に基づき、Nonaka ら⁴⁾ は

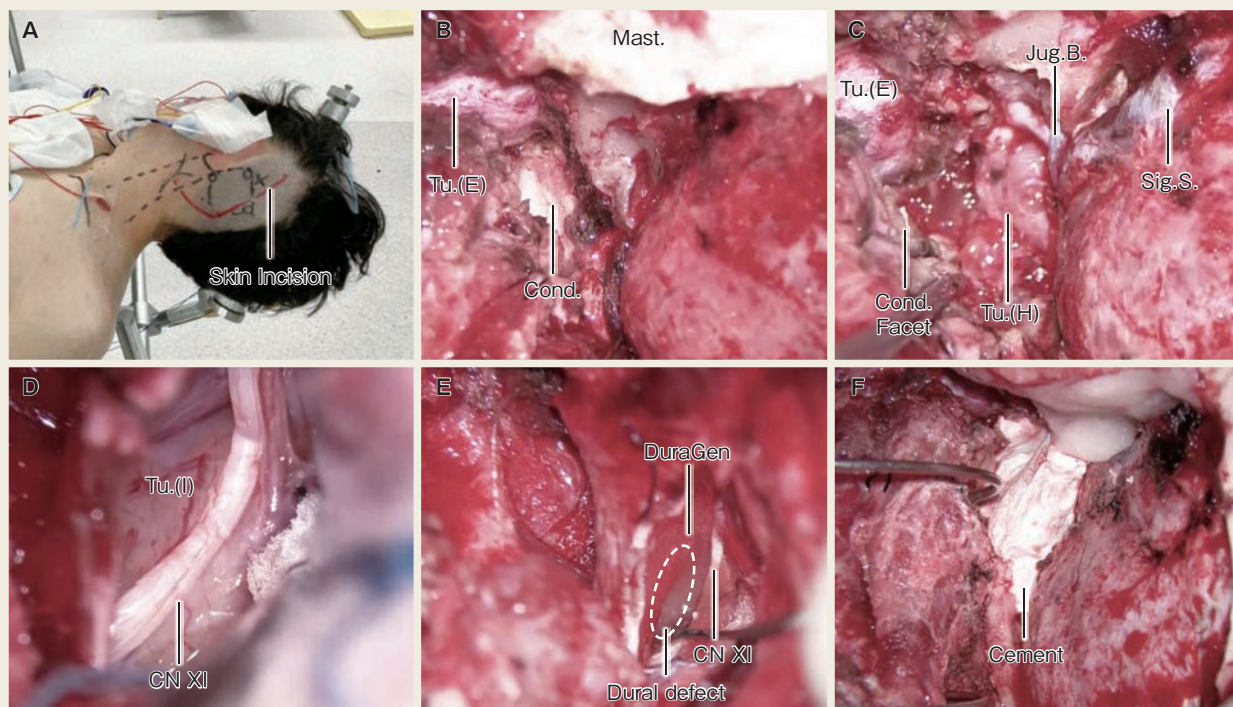


Fig. 2

A : Retroauricular skin incision in the supine position.

B : After the far-lateral approach and high cervical exposure, the occipital condyle and extracranial tumor were identified.

C : Condylar drilling exposed the sigmoid-jugular venous system and tumor in the hypoglossal canal. The atlanto-occipital joint was preserved to prevent subsequent deformity.

D : The intracranial tumor was carefully dissected from the surrounding neurovascular structures.

E : After near-total tumor resection, DuraGen was used for closure of the dural defect around the hypoglossal canal (white dotted circle) .

F : The occipital condyle was reconstructed with calcium phosphate paste.

Cond., condyle; CN, cranial nerve; Jug.B., jugular bulb; Mast., mastoid; Sig.S., sigmoid sinus; Tu. (E) , extracranial tumor; Tu. (H) , intrahypoglossal tumor; Tu. (I) , intracranial tumor

Type A (頭蓋内型), Type B (ダンベル型), Type C (頭蓋外型), Type D (末梢型) に分類している¹⁾. 我々は, Nonaka らと異なり, 主に頭蓋内, 舌下神経管内, 頭蓋外成分に分類し, 本症例のような全3領域に進展するものをトリプルダンベル型と呼んでいる⁶⁾. 頭蓋内成分のみの摘出には外側後頭下到達法で十分と考えられるが, 舌下神経管内や頭蓋外に進展する腫瘍の摘出を行う場合には, transcondylar approach による舌下神経管の開放が必要となる.

このように, 後頭顆および後頭骨の削除を行う場合には, 環椎後頭関節の安定性への考慮が必要となる^{2, 3, 7-12)}. 後頭顆の後方もしくは内側3分の1の削除では不安定性が問題になることは少なく, 50~70%以上の後頭顆あるいは関節面の削除の際には頭蓋頸椎移行部の固定が必要とされることが多い^{3, 7-12)}. Vishteh ら¹²⁾ は, 後頭下開頭など行わず正中側から後頭顆削除のみを行った死体を用いて生体力学的検討を行い, 50%以上の後頭顆削除時には環椎後頭関節の過度な可動性を認めた

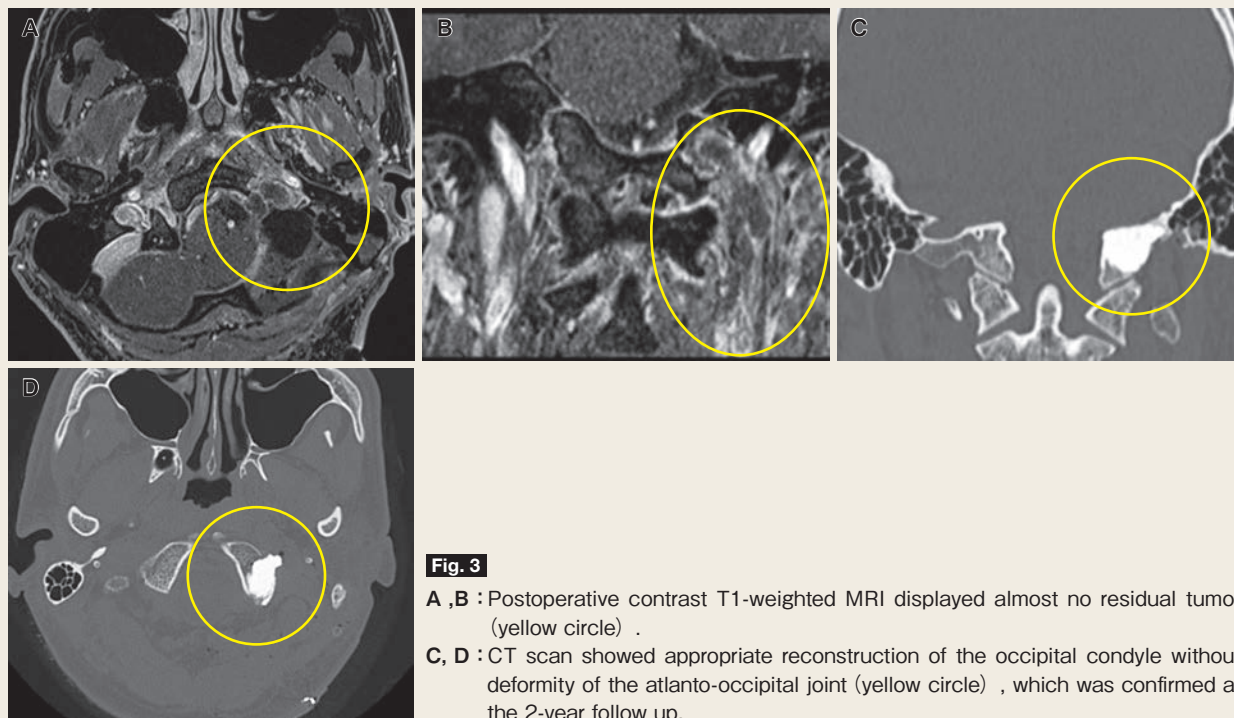


Fig. 3

A, B : Postoperative contrast T1-weighted MRI displayed almost no residual tumor (yellow circle) .
C, D : CT scan showed appropriate reconstruction of the occipital condyle without deformity of the atlanto-occipital joint (yellow circle) , which was confirmed at the 2-year follow up.

と報告している。また、Mazur ら^{10, 13)} は術 1 カ月後に環椎後頭関節の不安定性を来した 2 症例を報告するとともに、後頭下開頭・大孔開放とともに後方から舌下神経管まで後頭顆削除を行った死体を用いた生体力学的検討を報告している。舌下神経管を指標に骨削除を行っても骨削除体積が検体により大きく異なることを指摘するとともに、3 分の 1 以上の骨削除時には不安定性を来す可能性が考えられると報告している⁹⁾。なお、この検討では関節面を含む骨削除が行われている。Ichimura ら²⁾ は、舌下神経鞘腫の骨破壊により舌下神経管と頸静脈孔が連続しやすいことに着目し、術後の環椎後頭関節の安定性に考慮した手術法を提唱している。後頭顆周囲の 3 カ所（頸静脈孔後縁、大孔外側縁、大孔前縁）がその支持に重要と考え、特に大孔外側縁の温存が重要と述べて

いる²⁾。

我々は、頭蓋内、特に舌下神経管頭蓋内開口部周囲の十分な術野確保のため、大孔外側縁を削除し大孔は開放するようにしているが、Ichimura ら同様に後頭顆の削除を必要最小限に心がけ、特に後頭顆皮質骨および関節面を温存するようにしている。これは可能な限り本来の荷重・運動機能を温存するとともに、後頭顆内の骨ペースト充填による再建を行いやすくするためである。本症例においても後頭顆の削除は 3 分の 1 に留め、削除部位の補填に骨ペーストを補填することを術前から想定した。後頭窩削除部の再建に骨ペーストを使用した報告はこれまでにない。リン酸カルシウム骨ペーストの実臨床における強度は明確ではないものの、balloon kyphoplasty においては骨セメントを充填することで正常骨以上の生体力学的

強度となることが示されており、相応の強度が期待される¹⁴⁾。また、頭蓋骨においても、骨欠損部位に対する骨セメントの補填が強度を増すことを示した報告がある¹⁵⁾。しかし、関節面を欠損し、環椎後頭関節の主要な荷重・運動機能が大きく損なわれる場合には、骨ペーストの強度では不十分となる可能性があり、追加固定術を検討する必要があると考えられる。

IV. 結 語

頭蓋内・舌下神経管内・頭蓋外に進展を認めるトリプルダンベル型の舌下神経鞘腫において、transcondylar approach を用いて腫瘍を亜全摘し

た。十分な術野を確保しつつ、環椎後頭関節の安定性を保持するためには、後頭顆の皮質骨、特に関節面の温存と、削除部位に対する骨ペースト充填が有効と考えられた。

謝 辞

本稿執筆にあたり、特に環椎後頭関節の安定性につきご助言いただきました奈良県立医科大学脳神経外科・竹島靖浩先生に深謝いたします。また、東京医科大学脳神経外科への国内留学をお許しいただきました、奈良県立医科大学脳神経外科名誉教授・中瀬裕之先生に改めて深謝いたします。

COI

著者全員は日本脳神経外科学会へのCOI自己申告の登録を完了しています。本論文に関して開示すべきCOIはありません。

文献

- 1) Bindal S, et al: Hypoglossal schwannomas: A systematic review of the literature. J Clin Neurosci 62: 162-73, 2019
- 2) Ichimura S, et al: Surgical approach for hypoglossal schwannomas to prevent deformity of the atlanto-occipital joint. Acta Neurochir (Wien) 151: 575-9, 2009
- 3) 河野道宏: Transcondylar approach, 147-54 (河野道宏: 聴神経腫瘍・小脳橋角部腫瘍の手術とマネージメント. 中外医学社, 東京, 2021)
- 4) Nonaka Y, et al: Microsurgical management of hypoglossal schwannomas over 3 decades: a modified grading scale to guide surgical approach. Neurosurgery 69: ons 121-40; discussion ons 140, 2011
- 5) Katsuta T, et al: The jugular foramen: microsurgical anatomy and operative approaches. Neurosurgery 41: 149-201; discussion 201-2, 1997
- 6) Bulsara KR, et al: Microsurgical management of 53 jugular foramen schwannomas: lessons learned incorporated into a modified grading system. J Neurosurg 109: 794-803, 2008
- 7) al-Mefty O, et al: The transcondylar approach to extradural nonneoplastic lesions of the craniovertebral junction. J Neurosurg 84: 1-6, 1996
- 8) Bejjani GK, et al: Occipitocervical fusion following the extreme lateral transcondylar approach. Surg Neurol 54: 109-15; discussion 115-6, 2000
- 9) Bertalanffy H, Seeger W: The dorsolateral, suboccipital, transcondylar approach to the lower clivus and anterior portion of the craniocervical junction. Neurosurgery 29: 815-21, 1991
- 10) Mazur MD, et al: Delayed Occipitocervical Instability With Cranial Settling After Far-Lateral Transcondylar Surgery for Invasive Skull Base Tumor. Oper Neurosurg (Hagerstown) 16: 250-5, 2019
- 11) Shibao S, et al: Meningiomas Involving the Hypoglossal Canal: A Case Report and Literature Review. NMC Case Rep J 9: 171-6, 2022
- 12) Vishteh AG, et al: Stability of the craniovertebral junction after unilateral occipital condyle resection: a biomechanical study. J Neurosurg 90: 91-8, 1999
- 13) Mazur MD, et al: Occipitocervical Instability After Far-Lateral Transcondylar Surgery: A Biomechanical Analysis. Neurosurgery 80: 140-5, 2017
- 14) 武澤正浩, ほか: 骨粗鬆症性脊椎圧迫骨折に対するballoon kyphoplasty (BKP) —治療経験と短期手術成績—. 脳外誌 21: 959-66, 2012
- 15) Nasir S, et al: Biomechanical comparison of calcium phosphate cements for split cranial bone graft donor sites. Plast Reconstr Surg 130: 526e-34e, 2012

Hypoglossal schwannoma surgery considering reconstruction of atlanto-occipital joint

Yudai MORISAKI^{1, 2)}, Michihiro KOHNO¹⁾, Ken MATSUSHIMA¹⁾

1) Department of Neurosurgery, Tokyo Medical University

2) Department of Neurosurgery, Nara Medical University

Schwannomas originating from the hypoglossal nerve are extremely rare. Hypoglossal schwannomas often extend both intracranially and extracranially, by destroying the hypoglossal canal and occipital condyle. To achieve safe and maximum tumor resection, detailed anatomical knowledge and appropriate reconstruction of the atlanto-occipital joint are essential. We here present a patient with a triple dumbbell-shaped hypoglossal schwannoma, which was removed via the retrosigmoid and transcondylar approaches with high cervical exposure. To prevent deformity of the atlanto-occipital joint, the articular facet of the occipital condyle was preserved, and the occipital condyle was reconstructed with calcium phosphate paste.