脳幹部海綿状血管腫の戦略的顕微鏡手術アプローチ

村上 謙介¹, 上之原広司², 野下 展生³, 遠藤 俊毅⁴, 富永 悌二⁵

Microsurgical Approaches and Strategies for the Resection of Brainstem Cavernous Angiomas

Kensuke MURAKAMI, M.D., Ph.D.¹, Hiroshi UENOHARA, M.D., Ph.D.²,
Nobuo NOSHITA, M.D., Ph.D.³, Toshiki ENDO, M.D., Ph.D.⁴, and Teiji TOMINAGA, M.D., Ph.D.⁵

¹Department of Neurosurgery, Aomori Prefectural Central Hospital, Aomori, ²Department of Neurosurgery, Sendai Medical Center, National Hospital Organization, Sendai, Miyagi, ³Department of Neurosurgery, Saitama Red Cross Hospital, Saitama, ⁴Department of Neurosurgery, Kohnan Hospital, and ⁵Department of Neurosurgery, Graduate School of Medicine, Tohoku University, Sendai, Miyagi, Japan

Summary: We reviewed eight patients presenting with brainstem cavernous angiomas for whom microsurgical approaches were employed. The lesions were located in the dorsal midbrain in two patients, dorsal pons in two patients, ventral pons in three patients, and dorsal medulla oblongata in one patient. Microsurgical resection was performed via the occipital transtentorial approach for the dorsal midbrain lesions, the telovelar approach for the dorsal pons and medulla oblongata lesions, and the posterior transpetrosal approach for the ventral pontine lesions. Post-operative neurological status was either unchanged or improved in all cases. Establishment of the surgical corridor and a wide viewing angle for the lesion is an essential strategy to safely excise the brainstem cavernous angiomas with functional preservation of the surrounding vital neural structures.

Key words:

- ・ cavernous angioma
- ・ brainstem
- ・ surgical approach
- ・ posterior transpetrosal approach

Surg Cereb Stroke
(Jpn) 47: 260-265, 2019

はじめに

出血を繰り返し、神経脱落症状の進行を呈する脳幹部海綿状血管腫では、外科治療を積極的に考慮する必要がある²⁾⁴⁾⁷⁾⁹⁾。脳幹切開が不可避であり、非全摘では目的をなし得ない海綿状血管腫の摘出手術において、病変周囲の正常神経構造を障害することなく残存機能を温存するためには、精細な摘出手技はもちろんのこと、それを可能にする顕微鏡手術アプローチが手術戦略上の重要な因子の1つといえる。本稿では、筆頭著者がこれまで摘出術を行った脳

幹部海綿状血管腫を提示し、安全な顕微鏡手術アプローチ選択と手術手技の工夫について文献的考察とともに報告する。

症例・方法

症例は2004年以降に摘出術を行った脳幹部海綿状血管腫8例である。病変に最短で到達できる部位に脳幹切開を行うこととし、それを可能とする顕微鏡手術アプローチを選択した。手術ナビゲーションは症例1-6で用いたが、神経生理学的モニタリングは行っていない。術前後の神経学

¹青森県立中央病院 脳神経外科, ²国立病院機構仙台医療センター 脳神経外科, ³さいたま赤十字病院 脳神経外科, ⁴広南病院 脳神経外科, ⁵東北大学大学院 神経外科学分野(受稿日 2017. 12. 7)(脱稿日 2018. 3. 27)[連絡先: 〒030-8553 青森県青森市東造道2-1-1 青森県立中央病院 脳神経外科 村上謙介] [Address correspondence: Kensuke MURAKAMI, M.D., Ph.D., Department of Neurosurgery, Aomori Prefectural Central Hospital, 2-1-1 Higashi-tsukurimichi, Aomori, Aomori 030-8553, Japan]

Fig. 1 T2-weighted images of the cavernous angiomas in the Cases 1-8 (A-H).

的所見，手術アプローチとその治療成績について後方視的に検討した。

結 果

8症例の年齢は15-78歳で，男性5例，女性3例．海綿状血管腫の部位は，中脳背側2例，橋腹側2例，橋外側1例，橋背側2例，延髄背側1例であった(**Fig. 1, Table 1**)．術前の症候性出血は，1回が1例，2回が3例，3回が2例で，2例は段階的な神経学的所見の悪化や出血の拡大は呈さず，初回症候性出血後に進行性の悪化，拡大を示した．合併する静脈性血管奇形(developmental venous anomaly : DVA)は4例で認められた．DVAは，症例2のみ切開を行った脳幹表面に，他の3例は摘出腔内に確認され，全例で温存した．顕微鏡手術アプローチは，中脳背側の2例に対してoccipital transtentorial approach(OTA)を，橋腹側の3例でposterior transpetrosal approach(PTPA)を，橋背側2例と延髄背側の1例でtelovelar approach(TA)を選

択した．術後，神経学的所見の悪化や新たな症状の出現はなく，術後MRIにて全例で全摘と判断した．12-126カ月(中央値41.5カ月)フォローアップし，症例8で術後118カ月に再出血を生じたが再手術は行わなかった．最終フォローアップ時のmodified Rankin Scaleは0-2が5例，4が2例であった．

代表的症例

1. 症例4

患者は30歳男性．約1カ月前より左上肢および右顔面の軽度運動麻痺が出現したため近医を受診．脳幹部病変がみつかったため紹介された．1カ月後に左片麻痺が悪化し，構音障害も出現した．術前，上肢3/5，下肢4/5の左不全麻痺，modified House and Brackmann grade 2相当の右顔面麻痺を認めた．MRIでは橋右腹側に類円形の病変を認め，辺縁はT1，T2強調画像とも高信号，中心部は不均一な混合信号を示した(**Fig. 1D, Fig. 2A, B**)．症状出

Table 1 Eight cases with brainstem cavernous angiomas, which were surgically resected

	Age (years)/ Sex	Lesion	Hemorrhagic episode	DVA/anatomical relationship	Preoperative mRS	Surgical approach	Follow-up period (months)/mRS
1	42/F	Dorsal pons	2	—	4	TA	14/2
2	74/M	Dorsal midbrain	1 (progressive)	+ /dorsal	4	OTA	12/4
3	78/F	Lateral pons	2	+ /ventromedial	4	PTPA	47/4
4	30/M	Ventral pons	3	+ /dorsal	2	PTPA	60/1
5	48/M	Dorsal pons	1 (progressive)	—	2	TA	36/2
6	15/M	Dorsal midbrain	1	—	2	OTA	72/0
7	41/F	Ventrolateral pons	2	—	2	PTPA	24/1
8	54/M	Dorsal medulla	3	+ /rostral	4	TA	126/1 *

F: female, M: male, DVA: developmental venous anomaly, mRS: modified Rankin scale, TA: telovelar approach, OTA: occipital transtentorial approach, PTPA: posterior transpetrosal approach

*Hemorrhage at 118 months after surgery

現から約2カ月後に摘出術を行った。迷路の後方部(外側)を削ったのち、側頭-外側後頭下を骨切りして開頭し、PTPAにて行った(Fig. 2E)。隆起した三叉神経根部の尾側をナビゲーションガイド下に切開して病変へ到達した(Fig. 2F)。血腫除去後に、周囲のグリオーシス組織から剝離し、一塊で摘出した(Fig. 2G)。摘出腔後壁に異常静脈を認め、DVAと考え温存した。術後MRIで海綿状血管腫は全摘されており、摘出腔後壁に温存したDVAが造影され同定された(Fig. 2C, D)。左片麻痺は一過性に悪化し、新たに右外転神経麻痺もみられたが、術後1カ月で両者とも消失。独歩自宅退院した。術後5年のMRIでは再発、再出血はなく、左半身の突っ張り感が残っているものの、日常生活は自立して就労。modified Rankin Scale 1であった。

2. 症例8

患者は54歳男性。4年前に頭痛の精査でみつかった。起立・歩行障害、嚥下・構音障害で発症した。保存的治療で神経学的症状はいったん改善したが、10日後より再び悪化。出血病変の拡大もみられたため(Fig. 3A-C)。発症1カ月後にTAにて摘出術を行った。病変は第4脳室 median sulcus に達しており、同部を頭尾側に切開して摘出した。病変外の血腫腔が狭く、一塊には摘出できず、piecemealの切除となった。頭側に異常静脈を認め、術前画像では同定されていなかったが合併DVAと思われ、これは温存した。術後MRIでT1強調画像高信号は消失し、T2強調画像で摘出腔が髄液信号を呈しており全摘と判断した(Fig. 3D, E)。術後一過性に嚥下障害が悪化した改善し、modified Rankin Scale 2で自宅退院した。術後9年10カ月に再出血し(Fig. 3F-H)、嚥下障害を生じたが、リハビリテーションのみ行って自宅退院した。術後10年6カ月の最終フォローアップ時にはmodified Rankin

Scale 1であった。

考 察

かつては手術困難と考えられていた脳幹も、画像診断の進歩、機能温存を可能にした顕微鏡手術アプローチの確立、神経生理学的モニタリングなど手術支援の発達により、外科治療が考慮されるようになった。特に境界明瞭で、周囲正常神経構造を浸潤性ではなく圧排性に増大する海綿状血管腫は、脳幹の微細な機能構築を温存した切除さえ可能であれば、さまざまな脳幹部病変の中で最もその適応があるといえるかもしれない。摘出手術の目的は、再出血による神経学的悪化の回避であり、血管腫の残存はそのリスクを残すことになる以上、手術の目標は全摘出である¹⁾⁸⁾⁹⁾。その一方で、部位やサイズ、出血からの期間、DVAの合併など、予後予測因子に基づく適切な適応選択も重要である⁷⁾。

脳幹部海綿状血管腫の手術では、精緻な脳幹切開と脳幹内操作が重要となるが、その成否にはアプローチ選択が大きく影響する¹⁾。脳幹部海綿状血管腫をはじめとする深部病変への顕微鏡下での手術アプローチを考える場合、到達のためのアプローチ経路(視軸)と視野確保のためのアプローチ角度幅(視角)の2つが重要と思われる。アプローチ経路の選択には、血管腫の中心と血管腫まで最短となる脳幹表面部位、すなわち脳幹切開部位を結ぶ2-point methodが合理的である³⁾。頭蓋底に面する腹側病変では困難となるが、その多くは外側に伸展していて真の腹側病変は少ないともいわれており⁸⁾、頭蓋底アプローチを応用することにより可能になる。橋腹側病変に対するpetrosal approachは、Spetzlerら²³⁾によって良好な視野を供することが報告されて以来、その有効性が支持されている^{6)9)10)12)13)15)17)18)20)22)24)~26)}。侵襲的アプローチの必要性は限定的であるとの意見もあるが¹⁾⁸⁾、最近では正中および傍

Fig. 2 Pre and postoperative magnetic resonance imaging (MRI) and intraoperative findings in Case 4. Pre-operative MRI demonstrated a lesion presenting with high signal intensity on T1-weighted images, indicating cavernous angioma with subacute hemorrhage (A). The lesion was poorly enhanced with gadolinium administration (B). Post-operative MRI revealed complete excision of the lesion (C), and the contrast enhancement delineated the developmental venous anomaly coursing the dorsal surface of the resection cavity (D). The right anterolateral surface of the upper pons was exposed and was observed between the trigeminal and facial-vestibulocochlear nerve (E). The microsurgical trajectory is indicated by the navigation guide (F). The cavity was observed through a minimum incision of the brainstem after achieving complete resection (G).

A	B	E
C	D	
F	G	

正中腹側病変に対する内視鏡経鼻アプローチも報告されており、精緻な脳幹内操作が可能であるとすれば、内視鏡経鼻アプローチは真の脳幹腹側病変には有用かもしれない¹⁴⁾²¹⁾。

脳幹切開に関しては、血管腫まで最短となる部位に行くことに異論はないと思われるが、その切開口をできるだけ小さくする工夫は、神経核や神経路の密集した脳幹部の手術では特別必要な配慮といえる。そのためには、小さい切開口から血管腫に対して広い視野角がとれることが重要であり、顕微鏡手術では深部に視野角がとれないような狭く

直線的なアプローチは自ずと脳幹切開口の圧排、拡大が必要となってしまう (Fig. 4)。橋腹側病変の自験3例では、safe entry zoneとして報告されている peritrigeminal area に脳幹切開を行ったが⁵⁾¹⁹⁾、PTPA は小さな切開口に対して広い視野角を供した。脳幹腹側へ硬膜外に接近する anterior transpetrosal approach と比較して、皮切線や頭蓋底削除範囲が大きく、硬膜内に接近する点では侵襲度が高いが、結果的に血管腫周辺の脳幹正常構造に対して愛護的であると筆者は考えている。一方、中脳、橋の背側病変では、それぞれ OTA、TA によって後頭葉や小脳テント、

Fig. 3 Pre and post-operative magnetic resonance imaging (MRI) and computerized tomography (CT) of Case 8. Pre-operative MRI demonstrated a lesion presenting with high signal intensity on both T1 and T2-weighted images (**A, B**), which showed a high density in CT (**C**). Post-operative MRI demonstrated the excision of the lesion (**D, E**). Recurrent hemorrhage was observed in the MRI and CT images at 118 months after the microsurgical resection (**F-H**).

A|B

Fig. 4 An illustrative scheme showing the viewing angle through the microsurgical corridor and size of the brainstem incision. The approach trajectory is limited by skull base structures, including bone, dura, tentorium, and the overlying brain (**A**). A larger incision in the brainstem is required to observe the entire lesion when approaching through the limited width of trajectory. A wider approach trajectory is employed by drilling the skull base, incising the dura and the tentorium, and retracting the occipital or cerebellum effectively, which enable safe brainstem manipulation through a smaller incision (**B**).

小脳をいかに避けて広い視野角を得るかが重要となるが、前者では効果的な後頭葉の牽引と小脳テントの切開、後者では十分な脈絡裂の剥離による小脳の可動化と牽引がそれにあたる¹⁶⁾。アプローチ経路と視角にかかわる工夫の他に、精細でより低侵襲な脳幹内操作を可能にする方

法として、マイクロロール・リトラクターの使用や¹¹⁾、液状化した血腫そのものを操作の緩衝として利用するための手術タイミングの選択⁸⁾なども報告されている。

本報告8症例では、10年近い長期経過観察を行った1例で再出血を生じた。このことは術後MRIで残存を同定

できず、全摘ではなかったと判断せざるを得ない。そもそも海綿状血管腫本体の画像描出は容易ではなく、術前MRIで血管腫外の出血と血管腫本体の明確な判別が難しいことが多かった。再出血した症例8では唯一piecemealの切除を行っており、このことが摘出腔辺縁に残存させた要因かもしれない。全摘のためには、血管腫周囲の血腫を丁寧に除去してスペースをつくり、血腫とは異なる血管腫をグリオーシス層で剝離して一塊に切除することが重要である。そのためには、小さな脳幹切開口から摘出腔内部を広く見渡すことが重要であり、脳幹部海綿状血管腫の顕微鏡手術アプローチでは、広い視野角が確保できることが大切である。

結 語

脳幹部海綿状血管腫の手術について、文献的考察とともに自験例を報告した。病変周囲の正常神経構造に対する愛護的操作のため、顕微鏡手術アプローチにおいては適正な視軸（アプローチ経路）の選択とともに広い視角の確保が重要である。十分な脳裂の剝離やテント切開、頭蓋底切除により脳幹切開部までのアプローチ経路に広い視角を確保することが肝要で、この観点から橋腹側病変ではPTPAが有効であった。

本論文の要旨は、第46回日本脳卒中の外科学会(2017年3月：大阪)で発表した。

文 献

- 1) Abila AA, Turner JD, Mitha AP, *et al*: Surgical approaches to brainstem cavernous malformations. *Neurosurg Focus* 29: E8, 2010
- 2) Bertalanffy H, Benes L, Miyazawa T, *et al*: Cerebral cavernomas in the adults. Review of the literature and analysis of 72 surgically treated patients. *Neurosurg Rev* 25: 1-55, 2002
- 3) Brown AP, Thompson BG, Spetzler RF: The two-point method: evaluating brain stem lesions. *BNIQ* 12: 20-24, 1996
- 4) Dukatz T, Sarnthein J, Sitter H, *et al*: Quality of life after brainstem cavernoma surgery in 71 patients. *Neurosurgery* 69: 689-695, 2011
- 5) Ferroli P, Schiariti M, Cordella R, *et al*: The lateral infratrigeminal transpontine window to deep pontine lesions. *J Neurosurg* 123: 699-710, 2015
- 6) François P, Ben Ismail M, Hamel O, *et al*: Anterior transpetrosal and subtemporal transtentorial approaches for pontine cavernomas. *Acta Neurochirurg (Wien)* 152: 1321-1329, 2010
- 7) Garcia RM, Ivan ME, Lawton MT: Brainstem cavernous malformations: surgical results in 104 patients and a proposed grading system to predict neurological outcomes. *Neurosurgery* 76: 265-278, 2015
- 8) Giliberto G, Lanzino DJ, Diehn FE, *et al*: Brainstem cavernous malformations: anatomical, clinical, and surgical considerations. *Neurosurg Focus* 29: E9, 2010
- 9) Gross BA, Batjer HH, Awad IA, *et al*: Brainstem cavernous malformations: 1390 surgical cases from the literature. *World Neurosurg* 80: 89-93, 2013
- 10) Hauck EF, Barnett SL, White JA, *et al*: Symptomatic brainstem cavernomas. *Neurosurgery* 64: 61-71, 2009
- 11) Ichinose T, Goto T, Morisako H, *et al*: Microroll retractor for surgical resection of brainstem cavernomas. *World Neurosurg* 73: 520-522, 2010
- 12) Kashimura H, Inoue T, Ogasawara K, *et al*: Pontine cavernous angioma resected using the subtemporal, anterior transpetrosal approach determined using three-dimensional anisotropy contrast imaging: technical case report. *Neurosurgery* 58(1 Suppl): ONS-E175, 2006
- 13) King WA, Black KL, Martin NA, *et al*: The petrosal approach with hearing preservation. *J Neurosurg* 79: 508-514, 1993
- 14) Linsler S, Oertel J: Endoscopic endonasal transclival resection of a brainstem cavernoma: a detailed account of our technique and comparison with the literature. *World Neurosurg* 84: 2064-2071, 2015
- 15) MacDonald JD, Antonelli P, Day AL: The anterior subtemporal, medial transpetrosal approach to the upper basilar artery and ponto-mesencephalic junction. *Neurosurgery* 43: 84-89, 1998
- 16) Matsushima T, Abe H, Kawashima, *et al*: Exposure of the wide interior of the fourth ventricle without splitting the vermis: importance of cutting procedures for the tela choroidea. *Neurosurg Rev* 35: 563-572, 2012
- 17) 森迫拓貴, 渡部祐輔, 中条公輔, ほか: 脳幹部橋海綿状血管腫に対する経錐体到達法の有用性. 脳卒中の外科 45: 260-265, 2017
- 18) Oiwa Y, Nakai K, Masaki Y, *et al*: Presigmoid approach for cavernous angioma in the pons—technical note. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 42: 91-96, 2002
- 19) Recalde RJ, Figueiredo EG, de Oliveira E: Microsurgical anatomy of the safe entry zones on the anterolateral brainstem related to surgical approaches to cavernous malformations. *Neurosurgery* 62(3 Suppl 1): 9-15, 2008
- 20) Saito N, Sasaki T, Chikui E, *et al*: Anterior transpetrosal approach for pontine cavernous angioma—case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 42: 272-274, 2002
- 21) Sanborn MR, Kramarz MJ, Storm PB, *et al*: Endoscopic, endonasal, transclival resection of a pontine cavernoma: case report. *Neurosurgery* 71(1 Suppl Operative): 198-203, 2012
- 22) Seifelt V, Raabe A, Zimmermann M: Conservative (labyrinth-preserving) transpetrosal approach to the clivus and petroclival region—indications, complications, results and lessons learned. *Acta Neurochir (Wien)* 145: 631-642, 2003
- 23) Spetzler RF, Daspt CP, Pappas CT: The combined supra- and infratentorial approach for lesions of the petrous and clival regions: experience with 46 cases. *J Neurosurg* 76: 588-599, 1992
- 24) Steiger HJ, Hänggi D, Stummer W, *et al*: Custom-tailored transdural anterior transpetrosal approach to ventral pons and retroclival regions. *J Neurosurg* 104: 38-46, 2006
- 25) Viñas FC, Gordon C, Guthikonda M, *et al*: Surgical management of cavernous malformations of the brainstem. *Neurol Res* 24: 61-72, 2002
- 26) 横山邦生, 川西昌浩, 山田 誠, ほか: 前経錐体到達法で摘出した橋腹側海綿状血管腫の1例. 脳卒中の外科 45: 266-269, 2017