症例報告

髄膜腫と鑑別が困難であった多発性頭蓋内 Rosai-Dorfman disease の 1 例

岩 朝 光 利 土 持 廣 仁^{*1} 保 田 宗 紀 友 尻 茂 樹^{*2}
 継 仁 福 島 武 雄 志 多 由 孝^{*3} 福 田 敏 郎^{*4}

Intracranial Rosai-Dorfman Disease presenting Multiple Mass Lesions mimicking Meningioma : A Case Report and Review of the Literature

by

Mitsutoshi Iwaasa, M.D., Hirohito Tsuchimoti, M.D.^{*1}, Munetoshi Yasuda, M.D.,
 Shigeki Tomogiri, M.D.^{*2}, Hitoshi Tsugu, M.D., Takeo Fukushima, M.D., Yoshitaka Shida, M.D.^{*3},
 and Toshiro Fukuda, M.D.^{*4}

from

Departments of Neurosurgery, Fukuoka University Faculty of Medicine,
 Departments of ^{*1}Neurosurgery, ^{*2}Emergency, ^{*3}Radiology, and ^{*4}Pathology, Fukuoka Red Cross Hospital

Rosai-Dorfman disease (RDD) is a rare idiopathic histioproliferative disease that affects the lymph nodes. Extranodal involvement has been recognized, however central nervous system manifestations are extremely rare. The characteristic radiological features of intracranial RDD are quite similar to those of meningioma, except for the absence of tumor staining on angiography. We report here a rare case of multiple intracranial mass lesions associated with RDD. The radiological features of the case were unilateral multiple intracranial lesions, localized bony thickening of the skull and tumor staining on angiography. To the authors' knowledge, 57 cases of intracranial lesions associated with RDD have been reported previously, of which only 7 cases, including the present case, have demonstrated tumor staining on angiography. Thus, histological examination is essential to correctly diagnose RDD. We also present a review of previously reported intracranial RDD cases and discuss the clinical features and treatment strategies.

(Received June 6, 2006 ; accepted July 27, 2006)

Key words : Rosai-Dorfman disease, sinus histiocytosis, meningioma, hypervascular mass lesion, angiography

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 16 : 127-133, 2007

緒 言

Rosai-Dorfman disease (RDD) は、原因不明の非腫瘍性組織球増殖性疾患と考えられており、頭蓋内病変を合併することは稀である³⁸⁾³⁹⁾。また頭蓋内 RDD は、硬膜に付着し術前髄膜腫と診断された症例が多く、鑑別が困難である。一方、脳血管撮影で腫瘍濃染像を呈さない症例も報告されており、頭蓋内 RDD と髄膜腫との鑑別点

として指摘した報告もある²⁾¹⁷⁾¹⁹⁾⁴¹⁾⁴²⁾⁴⁹⁾。

今回われわれは、頭蓋骨の骨肥厚、血管撮影で腫瘍濃染像を呈した多発性頭蓋内 RDD の稀な 1 例を経験した。これまでの報告例を基に、その臨床像、画像上の特徴について考察する。

福岡大学医学部脳神経外科／〒814-0180 福岡市城南区七隈 7-45 [連絡先：岩朝光利]

Address reprint requests to : Mitsutoshi Iwaasa, M.D., Department of Neurosurgery, Fukuoka University Faculty of Medicine, 7-45 Nanakuma, Jyounan-ku, Fukuoka-shi, Fukuoka 814-0180, Japan

^{*1}福岡赤十字病院脳神経外科 ^{*2}同救急部 ^{*3}同放射線科 ^{*4}同病理部

A/B

Fig. 1 Lateral skull radiography (A) and bone window image of CT (B) on admission showing hyperostotic change (arrow) of the frontal bone.

**A/B/C/D
E/F**

Fig. 2 Preoperative MR T1-weighted images enhanced with Gd-DTPA showing multiple enhanced masses at the maxillary sinus (A), convexity (B, C, E) and falx (D, F), of which are homogeneously enhanced.

A/B/C **Fig. 3** Preoperative right external carotid (A-P view; A: arterial phase B: capillary phase) and left external carotid angiograms (C: A-P view) showing hypervascular mass lesions (arrows).

Fig. 4 A, B: Photomacrographs showing a tumor extirpated surgically (A: surface, B: cut surface).
C, D: Photomicrographs of the specimen showing infiltration of numerous histiocytes, plasma cells, lymphocytes and lymphophagocytosis (arrow) (H & E staining, $\times 100$ (C), $\times 200$ (D)).
E: Photomicrograph of the specimen showing that histiocytic cells are immunopositive for CD68 protein. $\times 200$.

症 例

患 者: 33 歳, 男性

主 訴: 痙攣発作

既往歴・家族歴・生活歴: 特記すべきことなし

現病歴: 2002 年 8 月 16 日, 睡眠中に強直性間代性痙攣が出現し, 当院搬入となった。搬入時, 痙攣は消失していた。

入院時理学的所見: 血圧 108/66 mmHg, 脈拍 72 回/分, 体温 36.5°C, 表在リンパ節腫脹なし。

入院時神経学的所見: 意識清明, JCS: 0, 瞳孔径は両側 3 mm, 瞳孔不同はなく, 対光反射は正常。明らかな麻痺はなく, その他神経学的異常所見はなかった。

画像所見: 頭蓋単純 X 線にて右円蓋部に骨肥厚がみられ (Fig. 1), 頭部単純 CT にて右円蓋部に 3 カ所, 右大脳鎌に 1 カ所の高吸収域を示す腫瘍がみられた。MRI で同部位は, T1, T2 強調画像で灰白質と等信号, 造影にて内部は均一に強く増強された (Fig. 2)。その他に上顎洞, 蝶形骨洞, 眼窩内にも同様の腫瘍がみられた。血管撮影で, 右円蓋部には右中硬膜動脈より栄養される腫瘍

Fig. 5 Postoperative ^{67}Ga scintigrams (A: A-P view, B: P-A view) showing multiple lesions of increased uptake (arrow) at falx, both humeri, right femur and both tibias.

Table 1 Summary of reported case of intracranial RDD with hypervascular mass lesions on angiograms

Case No	Authors	Year	Age/ Sex	Tumor locations	Multiplicity	Bony change
1	Trudel ⁴⁷⁾	1984	29 M	temporal	solitary	not available
2	Kitai R, et al. ²⁵⁾	2001	25 M	occipital	solitary	none
3	Hadjipanayis CG, et al. ¹⁶⁾	2003	52 M	cavernous sinus	solitary	no abnormal
4	Konishi E, et al. ²⁶⁾	2003	68 F	frontal	solitary	not available
5	Sato A, et al. ⁴¹⁾	2003	57 F	suprasellar, convexity c-p angle	multiple	spine not available
6	Toh CH, et al. ⁴⁶⁾	2005	60 M	occipital, cerebellum	multiple	not available
7	Iwaasa M, et al. (present case)	2004	33 M	frontal, falx (rt)	multiple	orbit hyperostosis

RDD; Rosai-Dorfman Disease, M; male, F; female, rt; right, c-p; cerebellopontine, CT; computed tomography scan, CE; contrast enhancement, T1; T1-weighted MR image, T2; T2-weighted MR image, Gd-E; Gd enhancement, low; low intensity signal, iso; iso intensity signal, high; high intensity signal, y; year

濃染像がみられ、右大脳鎌の腫瘍は左外頸動脈系より栄養されていた (Fig. 3)。

入院後経過: 画像所見より多発性髄膜腫を疑い、痙攣発作の原因となった右円蓋部腫瘍と眼窩内腫瘍に対して腫瘍摘出術を行うこととし、右大脳鎌部の腫瘍はアプローチが異なるため二期的に行うこととした。

術中所見: 右眼窩前頭頭頂側頭開頭を行い、硬膜を開開すると、円蓋部の腫瘍は硬膜に強く付着していたが、脳との境界は明瞭で容易に剝離でき、一塊として摘出した。腫瘍は白色調でゴム様に硬く、出血のコントロールは容易であった。眼窩内腫瘍は、orbitotomyを行い、眼窩内側壁に付着する境界明瞭な腫瘍を periorbita から剝離し摘出した。腫瘍の性状は、円蓋部腫瘍と同様であった。

病理組織像: 多数のリンパ球や形質細胞の浸潤と、大型の組織球の増生を認めた (Fig. 4)。組織球には lymphophagocytosis がみられ、免疫染色では S-100 蛋白, CD68, $\alpha 1$ -antichymotrypsin が陽性を示し、RDD と診断した。

術後経過: 術後経過は良好で、約 4 カ月後に大脳鎌部腫瘍を摘出した。RDD の組織診断を得たため、初回術後に Ga シンチを施行した。大脳鎌部腫瘍、両側上腕骨、右大腿骨、両側脛骨に hot spots を認めた (Fig. 5)。2006 年 5 月現在 (発症より約 3 年 9 カ月)、再発なく職場復帰している。

考 察

RDD は、1969 年に Rosai と Dorfman によって sinus histiocytosis with massive lymphadenoma として最初に報告された原因不明の非腫瘍性組織球増殖性疾患で、頭蓋内病変を合併することは稀である⁹⁾¹⁰⁾³⁸⁾³⁹⁾。臨床的には頸部リンパ節腫脹・発熱・白血球増多を特徴とし、組織学的には良性の組織球増殖性疾患で¹⁹⁾、80%の症例で頸

部リンパ節腫脹がみられる。しかし中枢神経系に発生した症例は約 5% と少ない¹⁹⁾⁴⁰⁾⁵⁰⁾。

頭蓋内 RDD は、これまでにわれわれが渉猟しえた限りでは 57 例で^{1)~8)11)~14)16)~37)40)~50)}、発生部位は、円蓋部、傍矢状洞、小脳橋角部、海綿静脈洞部など、髄膜腫の好発部位に一致していた。その他の部位として、小脳や第四脳室内に発生した症例報告もあった¹³⁾³¹⁾。MRI で腫瘍内部が均一に造影され、硬膜に付着した所見より術前髄膜腫と診断されることが多く、鑑別点として、血管造影で髄膜腫では外頸動脈系より腫瘍濃染像がみられるが、RDD では腫瘍濃染像を呈さないことが特徴とされている²⁾¹⁷⁾¹⁹⁾⁴¹⁾⁴²⁾⁴⁹⁾。しかし、頭蓋内 RDD 57 例中脳血管造影所見を記載した報告は少なく、本例を含め 15 例を数えるにすぎない。そのうち腫瘍濃染像がみられた報告は本例を含め 7 例で (Table 1)、年齢は 25~68 歳、性別は、髄膜腫と異なり、7 例中 5 例が男性であった。腫瘍の局在は大脳半球円蓋部が 6 例で、その他、海綿静脈洞、鞍上部、小脳円蓋部、小脳橋角部、大脳鎌であった。頭蓋内は多発したものは 7 例中 3 例で、2 例では脊椎、眼窩にも多発していた。頭蓋骨肥厚を記載した報告は本例のみで、CT で腫瘍造影効果がみられたものが 5 例中 3 例であった。MRI は 6 例に行われ、すべての症例でガドリニウムで増強効果がみられた。

頭蓋内に多発する RDD は中枢神経系以外にも多発するため、本症例のように頭蓋内病変で発症した場合は全身検索が必要である。本症例では Ga シンチを行い、頭蓋内病変の他に両側上腕骨、右大腿骨、両側脛骨に多発病変を認めた (Fig. 5)。骨病変は、病状が進行した場合病的骨折を起こすことがあり、全身検索はきわめて重要である。

確定診断は組織像で増殖したリンパ球と組織球からなり、組織球がリンパ球を貪食した lymphophagocytosis を特徴としている。本例では、形質細胞とリンパ球の増殖、

Table 1

CT scan	MR imaging	Angiography	Treatment	Postoperative radiotherapy	Follow-up
CE+	not available	tumor stain	subtotal resection	redation 15 Gy	1 y 4 mos
CE-	Gd-E+	hypervascular mass	subtotal resection	redation 40 Gy	1 y
CE-	Gd-E+	hypervascular mass	biopsy	γ -knife 24 Gy	13 mos
not available	T1 iso T2 low Gd-E+	hypervascular mass	biopsy	—	1 y 10 mos
CE+	T1 high T2 iso Gd-E+	hypervascular mass	subtotal resection	γ -knife 14 Gy	1 y 6 mos
CE+	T1 iso T2 iso-low Gd-E+	hypervascular mass	subtotal resection	—	4 mos
—	T1 iso T2 iso Gd-E+	hypervascular mass	complete resection	—	3 yrs

組織球による lymphophagocytosis があり、特徴的所見であった。また免疫組織学的検査で、S-100 蛋白、CD68、 α 1-antichymotrypsin が陽性を示すことも RDD の診断には重要である¹⁸⁾。本例でも、S-100 蛋白、CD68、 α 1-antichymotrypsin のいずれも陽性であった。

治療は、これまでの報告では、術前画像診断で髄膜腫と診断され摘出術が行われており、全摘した症例では再発は少ない。部分切除に終わった症例や摘出が困難で生検術に終わった症例では、術後放射線治療²⁵⁾、ガンマナイフ照射⁴¹⁾が行われているが、予後は良好である⁴¹⁾。血管造影で腫瘍陰影がみられた 7 例では、腫瘍摘出が 5 例に、生検術が 2 例に行われ、4 例で術後放射線療法、うち 2 例でガンマナイフが施行されている (Table 1)。再発は、全摘出例の 2 例⁶⁾⁴⁰⁾、部分摘出の 3 例⁴⁾²⁰⁾⁵⁰⁾にみられ、追加治療としてステロイド投与、放射線治療が行われている²³⁾。自然消退した症例報告もあり、診断が確定した場合、十分な経過観察が重要である。本症例でも副鼻腔病変は経過観察により自然消退した。頭蓋内 RDD の予後は、これまでの報告から良好であると考えられるが、頭蓋内多発病変に加え全身にも病変がある小児例では、予後不良の症例があり、注意深い経過観察が重要である⁷⁾。

本症例は、多発した頭蓋内病変を二期的に全摘出した。骨病変に対しては経過観察することで発症より 3 年 9 カ月を経過した現在再発なく職場復帰している。

結 語

1) 多発性頭蓋内腫瘍に多発性骨病変を伴った Rosai-Dorfman disease の稀な 1 例を報告した。

2) 脳血管撮影で腫瘍濃染像を呈し、頭蓋骨肥厚を伴い、画像診断で髄膜腫との鑑別が困難であった。

3) 確定診断には組織学的検討が重要で、診断確定後

は、Ga シンチなど全身検索が必要である。

文 献

- Andriko JA, Morrison A, Colegial CH, Davis BJ, Jones RV: Rosai-Dorfman disease isolated to the central nervous system: A report of 11 cases. *Mod Pathol* 14: 172-178, 2001.
- Asai A, Matsutani M, Kohno T, Fujimaki T, Tanaka H, Kawaguchi K, Koike M, Takakura K: Leptomenigeal and orbital benign lymphophagocytic histiocytosis. Case report. *J Neurosurg* 69: 610-612, 1988.
- Bhattacharjee MB, Wroe SJ, Harding BN, Powell M: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy — isolated suprasellar involvement. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 55: 156-158, 1992.
- Carey MP, Case CP: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy presenting as a meningioma. *Neuropathol Appl Neurobiol* 13: 391-398, 1987.
- Clark WC, Berry AD 3rd: Extranodal sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy: Isolated central nervous system involvement mimicking meningioma. *South Med J* 89: 621-623, 1996.
- Deodhare SS, Ang LC, Bilbao JM: Isolated intracranial involvement in Rosai-Dorfman disease: A report of two cases and review of the literature. *Arch Pathol Lab Med* 122: 161-165, 1998.
- Foucar E, Rosai J, Dorfman RF, Brynes RK: The neurologic manifestations of sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. *Neurology* 32: 365-372, 1982.
- Foucar E, Rosai J, Dorfman RF: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. An analysis of 14 deaths occurring in a patient registry. *Cancer* 54: 1834-1840, 1984.
- Foucar E, Rosai J, Dorfman RF, Eyman JM: Immunologic abnormalities and their significance in sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. *Am J Clin Pathol* 82: 515-525, 1984.
- Foucar E, Rosai J, Dorfman RF: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. Current status and future directions. *Arch Dermatol* 124: 1211-1214, 1988.
- Franco-Paredes C, Martin K: Extranodal Rosai-Dorfman disease involving the meninges. *South Med J* 95: 1101-1102, 2002.
- Friedman MJ, Rossoff LJ, Aftalion B, Khan A, Decker R, Steinberg H: Sinus histiocytosis presenting as a mediasti-

- nal mass. *Chest* 86: 266-267, 1984
- 13) Gaetani P, Tancioni F, Di Rocco M, Rodriguez y Baena R: Isolated cerebellar involvement in Rosai-Dorfman disease: Case report. *Neurosurgery* 46: 479-481, 2000.
 - 14) Griffiths SJ, Tang W, Parameswaran R, Kelsey A, West CG: Isolated intracranial Rosai-Dorfman disease mimicking meningioma in a child. *Br J Neurosurg* 18: 293-297, 2004.
 - 15) Gupta DK, Suri A, Mahapatra AK, Mehta VS, Garg A, Sarkar C, Ahmad FU: Intracranial Rosai-Dorfman disease in a child mimicking bilateral giant petroclival meningiomas: A case report and review of literature. *Childs Nerv Syst* 16: 1-7, 2006.
 - 16) Hadjipanayis CG, Bejjani G, Wiley C, Hasegawa T, Maddock M, Kondziolka D: Intracranial Rosai-Dorfman disease treated with microsurgical resection and stereotactic radiosurgery. Case report. *J Neurosurg* 98: 165-168, 2003.
 - 17) Huang HY, Liang CL, Yang BY, Sung MT, Lin JW, Chen WJ: Isolated Rosai-Dorfman disease presenting as peripheral mononeuropathy and clinically mimicking a neurogenic tumor: Case report. *Surg Neurol* 56: 344-347, 2001.
 - 18) Juric G, Jakic-Razumovic J, Rotim K, Zarkovic K: Extranodal sinus histiocytosis (Rosai-Dorfman disease) of the brain parenchyma. *Acta Neurochir (Wien)* 145: 145-149, 2003.
 - 19) Kattner KA, Stroink AR, Roth TC, Lee JM: Rosai-Dorfman disease mimicking parasagittal meningioma: Case presentation and review of literature. *Surg Neurol* 53: 452-457, 2000.
 - 20) Katz DS, Poe LB, Corona RJ Jr: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy: A case of simultaneous upper respiratory tract and CNS disease without lymphadenopathy. *Am J Neuroradiol* 14: 219-222, 1993.
 - 21) Kayali H, Onguru O, Erdogan E, Sirin S, Timurkaynak E: Isolated intracranial Rosai-Dorfman disease mimicking meningioma. *Clin Neuropathol* 23: 204-208, 2004.
 - 22) Kim M, Provias J, Bernstein M: Rosai-Dorfman disease mimicking multiple meningioma: Case report. *Neurosurgery* 36: 1185-1187, 1995.
 - 23) 木下良正, 安河内秀興, 津留英智, 山口 倫: 肥厚性硬膜炎に類似した Rosai-Dorfman disease の 1 例. *No Shinkei Geka* 32: 1051-1056, 2004.
 - 24) Kitai R, Sato K, Kubota T, Kabuto M, Kawano H, Kobayashi H, Tsuji T: Meningeal sinus histiocytosis mimicking lymphoplasmacyte-rich meningioma. Case report. *J Neurosurg* 84: 1051-1054, 1996.
 - 25) Kitai R, Llena J, Hirano A, Ido K, Sato K, Kubota T: Meningeal Rosai-Dorfman disease: Report of three cases and literature review. *Brain Tumor Pathol* 18: 49-54, 2001.
 - 26) Konishi E, Ibayashi N, Yamamoto S, Scheithauer BW: Isolated intracranial Rosai-Dorfman disease (sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy). *Am J Neuroradiol* 24: 515-518, 2003.
 - 27) Lopez P, Estes ML: Immunohistochemical characterization of the histiocytes in sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy: analysis of an extranodal case. *Hum Pathol* 20: 711-715, 1989.
 - 28) Losi L, Calbucci F, Mancini AM: Intracranial location of a case of sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy (Rosai-Dorfman disease) mimicking meningioma. *Pathologica* 90: 403-407, 1998.
 - 29) Mir R, Aftalion B, Kahn LB: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy and unusual extranodal manifestations. *Arch Pathol Lab Med* 109: 867-870, 1985.
 - 30) Mirra SS, Tindall SC, Check IJ, Brynes RK, Moore WW: Inflammatory meningeal masses of unexplained origin. An ultrastructural and immunological study. *J Neuropathol Exp Neurol* 42: 453-468, 1983.
 - 31) Morandi X, Godey B, Riffaud L, Heresbach N, Brassier G: Isolated Rosai-Dorfman disease of the fourth ventricle. Case illustration. *J Neurosurg* 92: 890, 2000.
 - 32) Natarajan S, Post KD, Strauchen J, Morgello S: Primary intracerebral rosai-dorfman disease: A case report. *J Neurooncol* 47: 73-77, 2000.
 - 33) Ng HK, Poon WS: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy localized to the sella. *Br J Neurosurg* 9: 551-555, 1995.
 - 34) Olsen EA, Crawford JR, Vollmer RT: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. Case report and review of a multisystemic disease with cutaneous infiltrates. *J Am Acad Dermatol* 18: 1322-1332, 1988.
 - 35) Panicker NK, Sabhikhi AK, Rai R: Rosai-Dorfman disease presenting as a meningioma. *Indian J Cancer* 33: 192-194, 1996.
 - 36) Petzold A, Thom M, Powell M, Plant GT: Relapsing intracranial Rosai-Dorfman disease. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 71: 538-541, 2001.
 - 37) Resnick DK, Johnson BL, Lovely TJ: Rosai-Dorfman disease presenting with multiple orbital and intracranial masses. *Acta Neuropathol (Berl)* 91: 554-557, 1996.
 - 38) Rosai J, Dorfman RF: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. A newly recognized benign clinicopathological entity. *Arch Pathol* 87: 63-70, 1969.
 - 39) Rosai J, Dorfman RF: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy: A pseudolymphomatous benign disorder. Analysis of 34 cases. *Cancer* 30: 1174-1188, 1972.
 - 40) Sakai K, Koike G, Seguchi K, Nakazato Y: Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy: A case of multiple dural involvement. *Brain Tumor Pathol* 15: 63-69, 1998.
 - 41) 佐藤 篤, 櫻田 香, 園田順彦, 斎藤伸二郎, 嘉山孝正, 城倉英史, 吉本高志, 中里洋一: 頭蓋内および脊柱管内に多発性病変を呈した Rosai-Dorfman disease の 1 例. *No Shinkei Geka* 31: 1199-1204, 2003.
 - 42) Shaver EG, Rebsamen SL, Yachnis AT, Sutton LN: Isolated extranodal intracranial sinus histiocytosis in a 5-year-old boy. Case report. *J Neurosurg* 79: 769-773, 1993.
 - 43) Siadati A, Powell SZ, Shahab I, Valadka AB, Parker JR: Pathologic quiz case: A 48 year-old woman with a dural-based intracranial tumor. *Arch Pathol Lab Med* 125: 1115-1116, 2001.
 - 44) Simons M, Dimitios P, Philip T: A new clinical entity mimicking meningioma diagnosed pathologically as Rosai-Dorfman disease. *Skull Base Surg* 8: 87-92, 1998.
 - 45) Song SK, Schwartz IS, Strauchen JA, Huang YP, Sachdev V, Daftary DR, Vas CJ: Meningeal nodules with features of extranodal sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. *Am J Surg Pathol* 13: 406-412, 1989.
 - 46) Toh CH, Chen YL, Wong HF, Wei KC, Ng SH, Wan YL: Rosai-Dorfman disease with dural sinus invasion. Report of two cases. *J Neurosurg* 102: 550-554, 2005.
 - 47) Trudel M: Dural involvement in sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. Case report. *J Neurosurg* 60:

- 850-852, 1984.
- 48) Udon H, Fukuyama K, Okamoto H, Tabuchi K: Rosai-Dorfman disease presenting multiple intracranial lesions with unique findings on magnetic resonance imaging. Case report. *J Neurosurg* **91**: 335-339, 1999.
- 49) Woodcock RJ Jr, Mandell JW, Lipper MH: Sinus histiocytosis (Rosai-Dorfman disease) of the suprasellar region: MR imaging findings a case report. *Radiology* **213**: 808-810, 1999.
- 50) Wu M, Anderson AE, Kahn LB: A report of intracranial Rosai-Dorfman disease with literature review. *Ann Diagn Pathol* **5**: 96-102, 2001.

要 旨

髄膜腫と鑑別が困難であった多発性頭蓋内 Rosai-Dorfman disease の 1 例

岩朝 光利 土持 廣仁 保田 宗紀 友尻 茂樹
 継 仁 福島 武雄 志多 由孝 福田 敏郎

症例は 33 歳, 男性. 全身痙攣で発症し, 福岡赤十字病院救急部に搬入された. 頭部 MRI で多発性腫瘤があり血管撮影で腫瘍濃染像を呈したことより多発性髄膜腫と診断し, 開頭腫瘍摘出術を行った. 病理組織診では, 多数のリンパ球や形質細胞の浸潤と大型の組織球の増生, lymphophagocytosis を認めた. 免疫染色で CD68 が陽性を示し, Rosai-Dorfman Disease (RDD) と診断した. これまでに渉猟しえた頭蓋内 RDD は 57 例で, 血管撮影上腫瘍濃染像を呈した症例は本症例を含め 7 例であった. 本症例は, 術後, 多発性骨病変が判明したが, 術前頭蓋内腫瘤が一側に多発し, 頭蓋骨の骨肥厚, 血管撮影で腫瘍濃染像があり, 髄膜腫との鑑別が困難であった. 多発性頭蓋内 RDD は稀で, 臨床像, 画像上の特徴につき考察した.

脳外誌 16: 127-133, 2007