症 例 報 告

中脳腹側部海綿状血管腫を pterional approach にて全摘出した 1 例

森 本 将 史 宮 本 享 菊 池 晴 彦
永 田 泉 高 橋 潤

A Successful Surgical Removal of a Ventral, Midbrain, Cavernous Angioma by Using a Pterional Approach : A Case Report

by

Masafumi Morimoto, M.D., Susumu Miyamoto, M.D., Haruhiko Kikuchi, M.D.,
Izumi Nagata, M.D., and Jun Takahashi, M.D.

from

Department of Neurosurgery, Faculty of Medicine, Kyoto University

We report a case of 57-year-old man with a ventral midbrain, cavernous angioma, which was successfully removed surgically by using a pterional approach.

On seeking medical helps, the patient complained of retroorbital pain and diplopia. A subsequent MRI revealed a ventral, midbrain, cavernous angioma. Surgery was indicated and a subtotal removal of the angioma was then performed using a subtemporal approach.

Three years later, the patient again experienced headache and diplopia, and developed left hemiparesis. A neurological examination identified Weber's syndrome and MRI revealed a recurred cavernous angioma with a hematoma. Thus, a total surgical removal of the angioma was then successfully performed by using a pterional approach.

Based on this experience, we have concluded that a ventral, midbrain, cavernous angioma can be effectively removed surgically by using a pterional approach.

(Received February 6, 1995 ; accepted January 17, 1996)

Key words : ventral midbrain, cavernous angioma, pterional approach

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 5 : 308-312, 1996

はじめに

脳幹部海綿状血管腫はテント上のもものと比較して再出血によって重篤な神経脱落症状をきたしやすく⁹⁾, 外科的治療のほかには有効な治療法がない。そこで近年根治療法として摘出術が広く行われているが、腹側部の全摘出報告例⁴⁾⁶⁾⁷⁾は、背側部^{1)~3)14)}に対し比較的少ない。今回われわれの施設において再出血を伴う中脳腹側部海綿状血管腫に対し、pterional approach にて新たな神経学的脱落症状なく全摘出術を施行し得たので、文献的考察を

加えて報告する。

症 例

患 者 : 57 歳, 男性

既往歴・家族歴 : 特記すべきことはなかった。

1989 年 10 月右眼窩部痛, 複視にて発症し, 他院にて MRI を施行され, 出血を伴う中脳右腹側部の海綿状血管腫と診断された。その後症状はいったん改善したため経過観察していたが, 1991 年 3 月症状が再度増悪した。

京都大学医学部脳神経外科〔連絡先: 森本将史, 〒565 吹田市藤白台 5-7-1 国立循環器病センター脳血管外科〕

Address reprint requests to : Masafumi Morimoto, M.D., Department of Neurosurgery, National Cardiovascular Center, 5-7-1 Fujishirodai, Suita-shi, Osaka 565, Japan

A/B/C

Fig. 1 Serial changes as seen in axial T1-weighted MR images

A : Before the first operation in March, 1991

B : After the first operation in April, 1991

C : Before the second operation in January, 1994

Fig. 2 Intraoperative photo showing a residual hematoma after total removal of the cavernous angioma

MRI 検査にて中脳右腹側部に再出血を伴う mass lesion を認めた (Fig. 1A). 1991 年 4 月手術目的で当科に入院となり, subtemporal approach にて摘出術を施行したが, 動眼神経が障害となり mass の後方が摘出しきれず亜全摘出となった. 術後 MRI にて mass 本体の大部分の摘出を確認したが, 画像上残存血管腫と血腫との判別は困難であった (Fig. 1B). 術中組織標本から海綿状血管腫と診断した. 以後新たな神経脱落症状も出現せず右動眼神経麻痺も軽快していたが, 1994 年 1 月頭痛, 嘔気, 複視の増悪とともに, 新たに左上肢脱力を訴えた. MRI を施行した結果, 残存血管腫の拡大, および後方に中脳大脳脚を圧排する再出血を認めた (Fig. 1C). そして 1994 年 2 月 15 日に手術目的で当科へ再入院となった. 入院時の神経学的所見として, Weber's syndrome

(右動眼神経麻痺, 左片麻痺 [4/5]), および軽度左半身触覚低下を認めた.

手術は, 1994 年 2 月 23 日, 右前頭側頭開頭にて pterional approach を施行した. まずシルビウス裂を遠位部より開放し, 右中大脳動脈から右内頸動脈へと至った. 右内頸動脈外側部より橋前槽に入り, 右動眼神経のすぐ外側で前方に突出する暗赤紫色の mulberry の形状に似た血管腫を確認した. 血管腫と周囲組織を剝離していくと, 血管腫後方の血腫が確認できた. その血腫を一部吸引すると, 後方に hemosiderin にて変色したくも膜をかぶった中脳腹側面があり, 数本の feeding artery を認めた. それらを処理した後, 血管腫に癒着していた動眼神経を慎重に剝離し, 中脳腹側面に接する陳旧性血腫を一部残し血管腫本体は全摘出した (Fig. 2). 術中所見から,

Fig. 3 Photomicrogram of a surgical specimen showing abnormally dilated vessels without neural tissue (H & E stain, × 250)

Fig. 4 Postoperative axial and sagittal, T1-weighted, MR images show no evidence of the removed residual cavernous angioma.

中脳大脳脚内側面で右動眼神経起始部外側付近の海綿状血管腫が後方へ出血し、その血腫を介して中脳大脳脚を圧排しているものと考えられた。また feeding artery が数本存在し、2 度にわたる再出血発症という点から、arterial component をもつ血管腫ではないかと思われた。術中の組織標本では血栓を有する拡張した血管を認めたが、神経組織は存在せず、海綿状血管腫と診断した (Fig. 3)。

術後 MRI にて血腫は残存しているものの、血管腫本体は全摘出されていると判断した (Fig. 4)。術後の経過は良好で、右動眼神経麻痺は改善し、左片麻痺および感覚障害は軽度残存するものの、他の脱落症状はなく、1994 年 5 月 3 日退院した。1995 年 5 月現在、再発の兆候はない。

考 察

MRI の普及に伴い発見されることの多くなった脳幹部海綿状血管腫であるが、近年 microsurgery 技術の発達に伴い外科的摘出報告例が多くみられる。1 つの血管腫が 1 年間に出血発症する危険性は 1% 以下という報告²⁾⁷⁾¹⁰⁾があり、脳幹部においても初回出血後局所症状のみで数週間～数カ月で自然緩解するケースが多い¹³⁾。そこで脳幹部海綿状血管腫に対して手術を行うべきか否かについては、議論の余地のあるところである。しかし、出血によって症状が進行する場合は、保存的療法では限界があり、なんらかの治療を積極的に施行するべきである。

脳幹部海綿状血管腫の治療に関するこれまでの報告を検討してみると、放射線治療で著明な効果を認めた報告例はない⁵⁾。また gamma-knife についても、Weil ら¹²⁾は、脳幹部血管腫 6 例において 2 例に再出血、3 例に周

Table 1 Operated cases of 7 brainstem cavernous angiomas

Case	Age	Sex	Location	Approach	Operation	Results
1	29	F	pons dorsal	midline suboccipital	removal of hematoma	good
2	38	F	pons dorsal	midline suboccipital	partial removal	re-bleeding
3	61	M	sup medullary verum	midline suboccipital	total removal	good
4	31	M	medulla dorsal	midline suboccipital	total removal	good
5	35	F	medulla dorsal	midline suboccipital	total removal	good
6	37	F	pons lateral	lateral suboccipital	removal of hematoma	re-bleeding
7	54	M	midbrain caudal	subtemporal	subtotal removal	re-bleeding

周囲組織の放射線障害を認めたとしており、Steiner¹¹⁾も17例中8例で再出血および放射線障害を認めたと報告している。すなわち、脳幹部においては特に周囲組織の障害による重篤な合併症をきたす危険性が高い。したがって現状では外科的摘出以外に有効な治療法はない。

当施設では、1986年12月～1994年3月までに7例の出血した脳幹部海綿状血管腫について手術を行った。患者の年齢は29～61歳（平均41歳）であり、部位、結果についてはTable 1の通りである。Robinsonら⁸⁾は、被膜外に出血した症例において、再出血の危険性が25%と有意に上昇するという報告をしている。特に脳幹部における再出血は重篤な障害をきたす危険が高いので、当施設では出血によって症状が進行するようであれば、積極的に外科的摘出を施行している。また摘出術に際し、臨床的に重大な morbidity および mortality が10～20%あるという報告もある¹³⁾。そこで部位については brain stem を保存できる approach が可能な pial surface、または endymal surface に接するものに限定した方がよい。手術時期については、出血後周囲の血腫が吸収される前にできるだけ早期に施行した方が周囲組織との剥離が容易である³⁾。以上のことより、脳幹部における海綿状血管腫に対する手術適応に関して考慮する点をまとめると、次のようになる。①出血によって症状進行がみられる、②extra-axial route にて approach が可能であり、brainstem の温存が可能である、③出血後血腫が残存する1カ月以内、の3点である。当施設でもそれに準じて手術を施行してきたが、いずれも手術操作による重篤な後遺症をきたしたものはなかった。ただ手術を施行するうえで部分摘出では再出血率が高いという事実を考慮するべきである。実際われわれの施設における7例のうち、部分摘出または血腫除去のみの4例中3例は再出血をきたした。そのうち1例は再手術で全摘出したが、残りの2例は再々出血をきたしており（うち1例は再々手術により全摘出）、全摘出が困難な場合には症候性の再出血の危険性を有意に高めるため、できるだけ全摘出を試みるべきである。

次に手術を施行する際特に注意するのは、① pial surface や endymal surface との接面に到達しやすく、周囲組織との位置関係を直視下に収めることのできる approach の選択、②合併しやすい venous malformation に対する注意、③再出血をきたす原因と考えられる feeder などの処置、の3点である。①については周囲組織との剥離が手術の中で最も細心の注意が必要な部分であるため、画像の情報を考慮に入れたうえで侵襲が少なく、orientation のつけやすい approach を慎重に考慮するべきである。②については海綿状血管腫は基本的には low driving pressure なので、摘出に際しそれほど出血の心配はないが、venous malformation を合併していることが往々にしてあり(26%)、損傷に注意しないと静脈性梗塞などの重篤な結果を招く⁸⁾。③については AVM と比較して low driving pressure であるものの、この症例のように再出血を繰り返し明らかな feeder が存在する場合、再出血の原因となる arterial component を内部に含む可能性が高く、feeder を術中にあらかじめ処置しておかないと、出血した場合止血操作による周囲組織の損傷を招き、全摘出も困難となる。

従来脳幹腹側部に対しては、手術操作の space が広く、brain stem との境界を近くで直視下に収めやすい subtemporal approach⁴⁾⁶⁾⁷⁾による報告例が多い。またこの approach を選択する際に問題となる側頭葉の過度の retraction を未然に防ぎ、より広い視野を確保できる点からも、特に頬骨弓切除を加える zygomatic approach⁴⁾⁷⁾⁸⁾は有用であると思われる。今回の症例でも1度目は画像上 mass が大脳脚前方に突出しているため、subtemporal approach にて mass の後方を十分に観察でき、中脳腹側面との剥離も可能であると判断し手術を施行した (Fig. 1)。しかし、動眼神経が障害となり、亜全摘出となった。2度目は海綿状血管腫の位置関係上 extra-axial route の approach がとりやすく、動眼神経が障害とならない中脳右前方部からの pterional approach を施行した。これは比較的深く狭い術野となるが、一般的に経験の多い approach であり、周囲重要

構造物を損傷することなく approach が可能である。術野の点でも大脳脚、動眼神経、周囲重要血管との orientation がつけやすいため、特に今回のような前側方に開く脳幹上部腹側部の血管腫に対しては有効であると思われる。いずれにせよ脳幹腹側部海綿状血管腫は背側面と比較して、特に周囲の重要構造物との剥離が困難かつ大切である。したがって術者の技術、画像の情報を十分考慮して、周囲重要構造物にできるだけ損傷を与えずに全体像を観察できる approach を選択するべきであり、その一つとして pterional approach も有用であると考え。

文 献

- 1) Bertalanffy H, Gilsbach JM, Eggert HR, Seeger W : Microsurgery of deep-seated cavernous angiomas : report of 26 cases. *Acta Neurochir (Wien)* **108** : 91, 1991.
- 2) Curling OD, Kelly DL, Elster AD, Claven TE : An analysis of the natural history of cavernous angiomas. *J Neurosurg* **75** : 702-708, 1991.
- 3) Fahlbusch R, Srauss C, Huk W, Rockelein G, Kompf D, Ruprecht W : Surgical removal of pontine-mesencephalic cavernous hemangiomas. *Neurosurgery* **26** : 449-457, 1990.
- 4) 藤津和彦 : orbito-zygomatic approach : 手術手技と臨床応用. *脳外* **19** : 301-308, 1991.
- 5) Kondziolka D, Lunsford LD, Coffey RJ, Flickinger JC : Stereotactic radiosurgery of angiographically occult vascular malformations : Indication and preliminary experience. *Neurosurgery* **27** : 892-900, 1990.
- 6) 黒川 泰, 阿美古征生, 岡村知實, 横山達智, 渡辺浩策, 石原秀行, 伊藤治英 : 脳幹部 cavernous angioma の直達手術. *脳卒中の外科* **22** : 47-52, 1994.
- 7) 中瀬裕之, 大西英之, 東保 肇, 宮本 享, 渡辺安晴, 伊東民雄, 山田圭介, 芝元啓治, 唐澤 淳 : Orbito-frontomalar Approach により全摘出した大脳脚海綿状血管腫. *脳外* **21** : 163-166, 1993.
- 8) Robinson JR, Awad IA, Little JR : Natural history of the cavernous angioma. *J Neurosurg* **75** : 709-714, 1991.
- 9) Robinson JR, Awad IA, Parandhi L, Magdinec M : Factors predisposing to clinical disability in patients with cavernous malformations of the brain. *Neurosurgery* **32** : 730-736, 1993.
- 10) Simard JM, Garcia-Bengochea F, Ballinger WE, Mickle JP, Quiling RG : Cavernous angioma : a review of 126 collected and 12 new clinical cases. *Neurosurgery* **18** : 162-172, 1986.
- 11) Steiner L : Treatment of arteriovenous malformations by radiosurgery. in Wilson CB, Stein BM (eds) : *Intracranial arteriovenous malformation*. Baltimore, Williams & Wilkins, 1984, pp. 295-313.
- 12) Weil S, Tew JM, Steiner L : Comparison of radiosurgery and microsurgery for treatment of cavernous malformations of the brainstem. *J Neurosurg* **72** : 336A, 1990.
- 13) Zabramski JM, Kawaguti S, Spetzler RF : Management of brainstem cavernous malformations. *Contemporary Neurosurgery* **16**(6) : 1-6, 1994.
- 14) Zimmerman RS, Spetzler RF, Lee KS : Cavernous malformations of the brain stem. *J Neurosurg* **75** : 32-39, 1991.

要 旨

中脳腹側部海綿状血管腫を pterional approach にて全摘出した 1 例

森本 将史 宮本 享 菊池 晴彦 永田 泉
高橋 潤

本症例は 57 歳、男性。1989 年 10 月に複視にて発症し、MRI にて海綿状血管腫と診断された。1991 年 3 月再出血によって症状が増悪し、subtemporal approach にて亜全摘出術を施行した。94 年 1 月再々出血によって Weber's syndrome をきたしたため、pterional approach にて全摘出術を施行し、術後大きな神経脱落症状なく退院した。脳幹腹側部海綿状血管腫の中でも、全摘出報告例は少なく、pterional approach を用いた報告例は稀である。今回脳幹腹側部海綿状血管腫摘出術における pterional approach の有用性について、脳幹部海綿状血管腫の手術適応に関する考察もあわせて報告した。

脳外誌 5 : 308-312, 1995