原 著

めまいを主訴とした小脳海綿状血管腫に静脈性血管腫を合併した一例

角谷 昌昭¹⁾・平山 肇²⁾・中山 明峰³⁾・稲福 繁³⁾

A case of Cavernous Anginoma Associated with Venous Anginoma

Masaaki Sumiya¹⁾, Hajime Hirayama²⁾, Meiho Nakayama³⁾, Shigeru Inafuku³⁾

¹⁾ *Department of Otorhinolaryngology, Ensyu General Hospital*

²⁾ *Department of Otorhinolaryngology, Toki General Hospital*

³⁾ *Department of Otorhinolaryngology, Aichi Medical University*

A 40-year-old male patient had a vertigo attack with vomiting; however, there was no hearing loss, headache, or palsy of arms or legs. On admission, the CT examination did not show any tumors, or infarctions of the brain, brain stem or cerebrum. Neurotological findings of an electro-nystagmography and caloric test did not show any abnormalities, except a platform test showed positive. Two days after admission, MRI examination showed a small mass (15 mm) in the left cerebellar peduncle. Previously, cavernous anginoma was considered rare, but the increasing use of MRI has demonstrated numerous cases. Typically, epileptic or other convulsive symptoms appear initially, but in our case, pathology was indicated by vertigo without other cranial nerve symptoms.

Key words: cavernous anginoma, venous anginoma, vertigo

はじめに

頭蓋内海綿状血管腫 (Cavernous Anginoma, 以下 CA) は比較的稀で, 若年者に起こる脳内出血の原疾患のひとつであるが, MRI の発達により容易に診断がつくようになり報告は近年増加してきている。しかし, 静脈性血管腫 (Venous Anginoma, 以下 VA) を合併した CA 症例の耳鼻咽喉科領域での報告はわれわれが渉猟し得たかぎり一症例の報告しか見当たらない。今回突然のめまいを主訴とした一例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例: 43歳男性。

主訴: めまい, 嘔気, 嘔吐。

既往歴: 15歳, 腎結石, 40歳, 胃潰瘍。

現病歴: 平成14年10月29日の昼に突然めまい, 嘔気, 嘔吐が出現し, 夕方になっても症状改善せず救命外来受診した。耳鼻咽喉科へ紹介され頭部CTを施行したが明らかな異常を認めなかった。初診時は耳症状, 頭痛, 意識障害はなく, めまい, 嘔気, 嘔吐, 歩行障害を認めた。微小循環改善剤の点滴, 重炭酸水素ナトリウムの静注を施行したが眼振が消失しないため入院となった。

初診時所見

頭位眼振検査: 左水平性斜向性眼振を正中, 左右頭位で認めた (図1)。

¹⁾ 静岡県厚生連遠州総合病院耳鼻咽喉科

²⁾ 岐阜県土岐市立総合病院耳鼻咽喉科

³⁾ 愛知医科大学医学部耳鼻咽喉科

指鼻試験：正常。

頭部 CT：初診時に施行。大脳，小脳，脳幹，小脳橋角部に明らかな異常は認めなかった（図 2）。

検査所見

頭位眼振検査の経過：発症 2 日（10月30日）の朝も左水平性斜行性眼振を認めたが，夕方には眼振は弱くなり発症 3 日目（10月30日）は一旦消失した。発症 4 日目（11月3日）に正中，左右頭位で左水平性眼振を認めたが発症 6 日目（11月 5 日）に完全に消失した。

標準純音聴力検査（11月 6 日）：両耳 11.3 dB（4 分法）。

重心動揺検査（11月 6 日）：ロンベルグ率 2.05

（14. 44/6. 06）。

カロリックテスト：発症後 7 日目（11月 6 日）に施行したが正常であった。

耳 X-P（シューラー，ステンパース法）：異常なし。

血液生化学検査（10月30日）WBC: 16000, N/L: 88. 0/5. 9, CRP: 0. 04。

電気眼振図検査（ENG）：発症後 8 日目（11月 6 日）に施行した。自発眼振，誘発眼振は認めなかった。ETT, OKP, OKN は正常所見であった（図 3）。

頭部 MRI：入院 2 日目に施行。左小脳半球の中央の白質に直径約 10 mm の低信号，内部に一部高信号域がみられる。T1 強調で低信号，T2 強

図 1 初診時の注視眼振検査，頭位眼振検査

注視時は明らかな眼振は認めず，頭位変換眼振検査では左回旋性，斜行性眼振を認め中枢性疾患を疑った。

図 2 電気眼振図検査（ENG）

ETT, OKP の波形を示す。急速眼球運動，追従眼球運動は正常。OKP も左右差なく眼振の解発は良好。

図3 初診時頭部 CT

明らかな異常とは判断できなかったが、左小脳半球に高吸収域が疑われる（矢印⇒）。

調で高信号、FLAIR で高信号を呈する線状のやや拡張した血管様構造がみられた（図4、5）。

脳血管造影（DSA）：一旦退院して脳神経外科入院の上で左椎骨動脈造影を施行したところ、静脈相で後頭静脈洞から分岐する血管に umbrella sign を認めた（図6）。

以上のことから左小脳半球内部に静脈性血管腫（VA）を合併した出血を伴う海綿状血管腫（CA）であり、この CA 内部の出血によりめまい発作を起こしたものと診断した。

治療

入院2日目の頭部 MRI で小脳海綿状血管腫が疑われた時からグリセロール 400 ml/日の点滴静注、鎮暈剤、抗不安薬を内服投与した。めまい症状は入院翌日には軽快し、入院後6日目には完全に消失した。

考察

CA は耳鼻咽喉科領域の症状のみでの発症は極めて稀で、てんかん、頭痛、脳出血で発症するケースが多いといわれている^{1)~7)}。出血源は血管奇形が多く、年齢的には20~50歳代に多く30歳代以降にピークがあり、男女差はない。発生頻度は0.4~0.7%で、出血の頻度は0.5~1%とされている。80%はテント上にみられるが、後頭蓋窩では橋や小脳半球に好発する⁸⁾。

図4 入院2日目に施行した頭部 MRI（T2 強調）

左小脳半球の中央の白質に直径約 10 mm の低信号、内部に一部高信号域がみられる（矢印⇒）。

VA は静脈が発達する過程での変異と考えられており、拡張した静脈よりなり放射状に配列する髓質静脈と1本の太い流出静脈をもつ。この特徴は血管造影にて umbrella sign としてみられる。好発部位は前頭葉、小脳深部白質で最も多い血管奇形である。一般に出血の頻度は極めて低いが、後頭蓋窩に発生するものでは合併した CA からの出血で発症することがあるといわれている⁷⁾。

CA の CT 上の特徴は石灰化を含む辺縁明瞭な不規則な形の高信号を呈し、mass effect は少なく造影効果があることが多い。MRI 上の特徴は T2 強調像において内部は低信号から高信号が混在するポップコーン様構造を示し、周囲にヘモジリンによる低信号帯を認める⁸⁾。今回の症例は初診時には中枢性を疑う眼振所見のみで初診時頭部 CT では明らかな異常を認めなかったが、入院2日目の頭部 MRI では左小脳半球の中央の白質に直径約 10 mm の低信号、内部に一部高信号域がみられ、T1 強調で低信号、T2 強調で高信号、FLAIR で高信号を呈する線状のやや拡張した血管様構造がみられた。このことから VA に合併した CA と診断され、めまい発作が海綿状血管腫内の出血により生じたと推察でき、頭部 MRI の有用性を再認識した。しかしながら、電気眼振図検査（ENG）では ETT, OKP, OKN で異常所見を認めなかったため神経学的な特徴が乏しい印象で

図5 頭部 MRI (T2 強調)

左上の写真は全体図。右下は小脳部の拡大図。

海綿状血管腫である直径約 10 mm の低信号 (矢印↑) の内側に静脈性血管腫である線状のやや拡張した血管様構造がみられた (右下の拡大写真の矢印⇒)。

図6 左椎骨動脈造影

静脈相で後頭静脈洞から分岐する血管に umbrella sign (矢印↓) を認めた。

ある。これだけ広い範囲にわたって障害されたにも拘わらず眼球運動障害が少なく重心動揺検査で

のみ異常がみられたことは、今後このようなめまい疾患を診ていく上でひとつの啓蒙になるかと思

う。

治療法は出血の危険性が高い場合などを除いては腫瘍全摘術が一般的である¹⁾⁴⁾⁵⁾。本症例は低年齢、出血発症であることから手術を考えたが、腫瘍が小さいことから術後脳硬塞を併発する可能性があるため、外来で経過観察して今後手術を行うか否か本人と相談の上決める予定である。

ま と め

1. めまいで発症した小脳海綿状血管腫に静脈性血管腫を合併した稀な一例を報告した。

2. 急激に発症するめまい患者の中には今回のような症例も念頭に置くべきである。

謝 辞

今回この論文をまとめるに当たり御指導いただきました愛知医科大学耳鼻咽喉科名誉教授 石神寛通先生、土岐市立総合病院脳神経外科 熊谷安雄先生に感謝致します。

本論文の要旨は第107回遠近江医学会学術講演会（浜松市）、第70回日耳鼻静岡県地方部会学術講演会（浜松市）、第62回めまい平衡医学会総会（横浜市）において発表した。

文 献

- 1) 志和成紀, 石井正則, 杉本春美, 他: めまいを主訴とした Cavernous Angioma の 1 例. 耳鼻展望 34: 4: 457-460, 1991
- 2) 佐久間仁, 大河内幸男, 馬場陽子, 他: 難聴, めまいで発症した脳幹部海綿状血管腫の一症例. 耳鼻臨床 補 43: 70-76, 1991

- 3) 村岡賢一郎, 伊勢田恵一, 相原 寛, 他: Venous angioma を合併した脳幹部 cavernous angioma に対する診断と治療. 香川中病医誌 22: 30-35, 2003
- 4) 今尾幸則, 矢野 高, 田辺祐介: 橋に静脈性血管腫と海綿状血管腫を合併した1手術例. 岐阜市民病年報 17: 59-61, 1997
- 5) 吉川茂樹, 池田佳充, 西平 修, 他: めまい・難聴を主訴とした小児頭蓋内血管腫の 1 例. 耳鼻咽喉 39: 23-27, 1993
- 6) Van Calenbergh F, Demaerel P, Scoiot R, et al: Acquired cerebellar cavernous angioma following childhood radiotherapy in a patient with neurofibromatosis type 1. Acta Neurol Belg 103: 103-106, 2003
- 7) 佐藤光夫, 仲野雅幸, 笹沼仁一, 他: 多発性脳海綿状血管腫の MRI 診断. 脳と神経 55: 172-173, 2003
- 8) Del Curling O Jr, Kelly DL, Elster AD, et al: An analysis of the natural history of cavernous angioma. J Neurosurg 75: 702-708, 1991

原稿到着: 平成16年 8 月 2 日

別刷請求先: 角谷昌昭

〒430-0917 静岡県浜松市常盤町144-6

静岡県厚生農業協同組合連合会遠州総合病院

耳鼻咽喉科

E-mail: m-sumiya@ken.ja-shizuoka.or.jp