脊髄内海綿状血管腫 : 6 例報告と文献的考察

総合せき損センター

柳 澤 義 和・芝 啓一郎

植 田 尊 善・大 田 秀 樹

森 英 治・加 治 浩 三

弓 削 至・河 野 修

九州大学大学院神経病理学教室

岩 城 徹・野 村 裕

6 Cases of Intramedullary Cavernous Hemangioma

Yoshikazu Yanagisawa, Keiichiro Shiba, Takayoshi Ueta,

Hideki Ohta, Eiji Mori, Kohzou Kaji,

Itaru Yuge, and Osamu Kawano

Spinal Injury Center, Fukuoka, Japan

Tohru Iwaki, and Hiromu Nomura

Department of Neuropathology, School of Medicine,
Kyushu University, Fukuoka, Japan

Intramedullary cavernous haemangioma is very rare, and often diagnosed before intramedullary bleeding. We experienced six cases (five female, two male) from 1980 to 2001 in our hospital. Their ages ranged from 24 to 60 years. Lesions were located from the lower cervical to middle thoracic medulla. Magnetic resonance imaging (MRI) showed T2: low indicating intramedullary bleeding in most cases. We used the Frankel scale for neurological assessments. Five at of the six cases underwent laminectomy and microscopic tumor extirpation. Two operated cases suffered complicated posterior cord disturbance. However, five cases except one preoperative Frankel A nainfained Frankel D at the end of follow-up (from one month to seven yers, eight months). The changes in hemoglobin lead to MRI findings: T1;isointensity/T2; hypointensity at acute bleeding, T1;hyperintensity/T2;hyperintensity at subacufe bleeding, and T1;hypointensity/T2;hypointensity at over one month after bleeding. The most important findings of cavernous haemangioma are not enhanced at Gd-DTPA, and there are no abnormal findings by angiography. We recommend patients with symptoms to undergo operation as early as possible when diagnosed as cavernous haemangioma.

Key words : cavernous haemangioma (海綿状血管腫), intramedullary bleeding (髄内出血), diagnosis (診断), MRI findings (MRI 所見), timing of operation (手術タイミング)

は じ め に

髄内出血を生じやすい血管奇形である海綿状血管腫

は重篤な麻痺を発症する以前に MRI にて診断されることも多く、特に麻痺が軽度な症例では手術適応に苦慮することがある。その診断と治療について検討を行っ

表 1

症 例	年 令	主 訴	入 院 ま での 期 間	病 巣 高 位	MRI 所見	Laminectomy 範囲	術中 moni- toring 所見	術前麻痺 Frankel	術直後の麻 痺	Follow up 期間	経過観察時 麻痺
1	24 男	右下腹部～腰部のし びれ 左下肢のしびれ	2 yr 3 mos	Th8/9	T1 : iso T2 : iso in low	Th 8-9	電 位 80% 低下	D	後索路症状	3 yr 3 mos	位置覚低下 (後索路症 状)
2	50 男	右拇指 fasciculation 歩行困難、両下肢遠 和感	3yr	C5/6	T1 : low T2 : low Gd : enhance (－)	C4-6	大きな変化 なし	D	左手指と両 下肢のしび れ	1 mos	両下肢感覚 低下
3	26 女	左半身のしびれ	3 yr	C5/6	T1 : high T2 : high in low Gd : enhance (－)	C4-7	電 位 20% 低下	D	左上肢筋力 低下と両下 肢感覚低下	1 yr	Th9 以下感 覚低下
4	48 男	頸部痛 左肩痛	3 mos	C5-Th2	T1 : iso～low T2 : high in very low Gd : enhance (±)	—	—	D	—	—	頭頸部痛
5	48 男	歩行困難 進行性両下肢麻痺	3 mos	Th6/7	T1 : high T2 : high Gd : enhance (－)	Th6-8	End killed potential (+)	A	両下肢完全 麻痺	7 yr 8 mos	車椅子移動
6	38 男	背部痛 歩行困難	5 yr	Th2/3	T1 : high T2 : high in low Gd : enhance (－)	Th2-4	電位低下	D	後索路症状	2 mos	二本杖歩行

たので報告する。

対 象

症例は1980年から2002年まで当センターで経験した40例の髄内腫瘍のうち海綿状血管腫と診断された6例で、年齢は24から50歳の男女(男5例, 女1例)であった。初発症状から入院までの期間は3ヶ月から5年であった。

方 法

調査項目は初発症状、入院時症状および神経学的所見、画像所見(単純X線、脊髄造影、MRI、血管造影など)、術中所見、脊髄モニタリング、経過観察時症状および神経学的所見である。術前後の神経学的評価はFrankel分類にて行った。経過観察期間は1ヶ月から7年8ヶ月であった。

結 果

初発症状は全例、四肢・体幹の痛みやしびれであった。術前の麻痺はFrankel D: 5例, Frankel A:

1例であった。単純X線像では所見なく、髄液所見にも異常は見られなかった。脊髄造影では6例中2例で脊髄に腫大が見られた。MRI像ではT1強調画像では一定の傾向を示さずT2強調画像ではlowを呈しGd-DTPAにて増強効果はなかった。6症例中2症例で血管造影を行ったがともに異常所見を認めなかった。6例中1例で患者の希望により保存的に経過を観察した。5例で1椎間から3椎間の椎弓切除術(症例3には椎弓形成術)ならびに鏡視下腫瘍摘出術を行った。手術時間は平均3時間17分(2時間10分から4時間25分)で、術中出血は平均270.5g(96gから445g)であった。術中モニタリングでは手術例5例中3例で術中に振幅の低下が見られ、術前よりFrankel Aであった1例ではend killed potentialを認め、残りの1例では大きな波形変化はなかった。術前後からFrankel Aであった1症例を除く2症例で術直後に痛覚触覚の低下、深部感覚低下などの後索路症状を合併した。経過観察時、術前よりFrankel Aであった1症例を除く5症例(保存例を含む)でFrankel Dを維持した。ただし、術直後より後索路

1) 初診時 MRI T1 : high とその周囲 low, T2 : high in low

2) 術直前 T1 : 中心部 low, T2 : low area の拡大, Gd-DTPA : 造影なし

図1 MRIの説明

図2 顕微鏡下所見

症状を合併した2例中1例（症例6）では症状の悪化を認めた。

症 例

〈症例1〉50歳男性

主訴：軽度歩行困難。現病歴：平成10年より右母指痛自覚し平成13年より両肩以下上肢のしびれが出現し徐々に歩行困難となり入院となった。入院時神経学的所見では両手掌の感覚低下、両下肢振動覚低下、反射はTriceps以下両側で亢進しFrankel Dであった。画像所見（図1）は初診時MRIでT1：highとその周囲low，T2：high in lowを認めた。術前の所見はT1：中心部low，T2：low areaの拡大があり，Gd-DTPAでは増強効果はなかった。治療はC4-6 laminectomy および鏡視下腫瘍摘出術を行った（手術時間：2時間10分，術中出血：111g）。術中所見（図2）はC5/6部 cord 背側が青黒く変色し髄内ではTumor 周囲に黄色調のヘモジデリンと思われる肉芽組織が取り巻いていた。術中モニタリング所見は振幅の低下など波形の大きな変化は見られなかった。病理所見（図3）では一層の血管内皮細胞と細胞成分

図3 病理所見

に乏しく均一に壁が拡張した血管の異常増殖が見られその周囲脊髄組織には古い出血を示唆するヘモジデリンの沈着や線維性グリオシス，慢性炎症細胞浸潤などを認めた。術後1ヶ月後は両足底しびれのみで術前のFrankel Dであった。

考 察

髄内出血はhemoglobinの変化（deoxy-hemoglobin から methemoglobin そして

hemosiderin へ)によりMRI所見が異なる³⁾。つまり、出血直後1週間以内の急性期に血腫は等信号となり描出困難、その後1週間から1ヶ月後の亜急性期ではT2でhigh in lowとなる。このときのhighは血腫、lowはhemosiderinの貯留、血液の流れ、石灰化と解釈される。慢性期にはT1よりもT2画像の方がより明瞭にhigh(高信号)を呈するが、T2でlow in highとなりこのときのlowは血腫、highはグリオーシスと解釈される⁴⁾。またGd-DTPAではどの時期においても増強効果ない。これは他の髄内腫瘍との鑑別点である。また血管造影では異常血管などを認めず他の血管腫瘍(奇形)との鑑別となる。臨床発症形式が慢性経過をたどり増悪緩解をくり返し、MRI上でT2強調画像でhighならば多発性硬化症と、また急速な脊髄障害症状を呈しMRI上T1強調画像でisoならば脊髄梗塞と鑑別は困難のことが多い⁴⁾。本疾患のような静脈性出血を来すものは軟膜を破れず、くも膜下出血に至らないため髄液所見では異常所見がなくても脊髄出血を否定できないといわれている⁴⁾。手術時期については異論は多いが、Canaveroらは初回出血時の手術は避けた方がよいという意見であり¹⁾、長島らも第2回目の出血があり進行性の神経症状を来しhematomyeliaまで増悪する症例では完全摘出するのが望ましいというが⁵⁾、海綿状血管腫は再出血により神経学的悪化が認められることが多く、脳内無症候性海綿状血管腫に比べ年間出血率は1.6%/年/人と高い¹⁾。また手術により神経症状の改善を得られることから可能な限り全摘出を目指すべきである³⁾。当センターでも症状を有する症例では診断後早期に手術を考慮することが望ましいと考える。次に髄内海綿状

血管腫の再発例(非完全摘出例を含む)については現在のところ報告はないが、膝の滑膜・骨格筋・眼窩内・直腸・中脳に關しての再発例が報告されている。また、海綿状血管腫の新生に關して一般的には胎生期血管網の遺残あるいは発生異常に由来する先天性血管奇形とされているが、MRIの普及により新生病巣の報告も見られるようになってきている²⁾。

結 語

- ① 6例の海綿状血管腫を経験したので報告した。
- ② MRIではT2: high in low, Gd-DTPAによって増強効果がない。
- ③ 血管造影にて異常所見を認めない。
- ④ 症状を有する例では診断後早期に手術を考慮すべきである。

参 考 文 献

- 1) Canavero, S. et al.: Spinal intramedullary cavernous angiomas: a literature metaanalysis. Surg. Neurol., 41: 381-388, 1994.
- 2) Detwiler, P. W. et al.: novo formation of a central nervous system cavernous malformation: Implication for predicting risk of hemorrhage. J. Neurosurg., 87: 629-632, 1997.
- 3) 五十棲孝裕, 他: 大脳・脳幹・脊髄に発生した多発海綿状血管腫. 脊椎脊髄, 13(9): 869-874, 2000.
- 4) 三井公彦: 脊髄出血: 特に動脈成分をもたない血管奇形による脊髄出血について. 脊椎脊髄, 3(10): 769-775, 1990.
- 5) 長島親男, 他: Hematomyeliaの形成過程をMRIによって経時的に追跡し得た脊髄髄内海綿状血管腫: 組織学的にhematoidin沈着を認めた手術例. 脳神経外科, 24(12): 1125-1132, 1996.