中枢神経系の海綿状血管腫

—診断と治療について—

福井 仁士・沼口 雄治*・沢田 浩次・河井 宏—**

岸川 高*・倉本 進賢**・北村 勝俊

Cavernous Hemangioma of the Central Nervous System

—Its Diagnosis and Treatment—

MASASHI FUKUI, YUJI NUMAGUCHI*, KOJI SAWADA, KOICHI KAWAI**,
TAKASHI KISHIKAWA*, SHINKEN KURAMOTO** and KATSUTOSHI KITAMURA

Department of Neurosurgery, Kyushu University

**Department of Radiology, Kyushu University*

***Department of Neurosurgery, Kurume University*

Summary

Seven surgical cases of cavernous hemangioma (cavernoma) of the CNS was analysed. Of these cases, one was intracerebral (intraventricular), three extracerebral in the middle fossa, one intraspinal intramedullary (C4-6), and two intraspinal extradural (T4-6, T5-6). The age of the patient on admission ranged from 9 to 62 years, mostly over 40 years. The duration of the symptoms before admission ranged from 1.5 months to 11 years. Sudden onset of the illness suggesting a hemorrhage in or around the tumor was found in 2 cases. The signs and symptoms in all patients were divided into three groups, namely, those of increased intracranial pressure, of local compression, and of hemorrhage.

The plain X-ray films revealed abnormalities in all but an intraspinal extradural case. RI scan was done in 2 intracranial cases showing a positive uptake in both cases. CT scan was done in a case of the middle fossa and revealed a slightly high density area which was markedly enhanced with contrast media.

Angiography was done in all intracranial cases and in a cervical intramedullary case. The commonest finding in the intracranial cavernomas was an avascular mass lesion with or without faint tumor stain. However, in a case of the middle fossa the avascular mass on conventional angiography turned to a vascular mass on angiography with more contrast media (15 ml) and longer injection time (4 sec.). We called this method prolonged (or slow) injection angiography. Small venous poolings at the site of tumor were noted in an intracerebral case by conventional angiography. Neuroradiologic diagnosis of cavernoma of the CNS would be attained by the findings, 1. localized hot area in RI scan, 2. high density area with definite contrast enhancement in CT scan, 3. avascular or hypovascular mass lesion with no or poor visualization of feeding arteries in conventional angiography, 4. presence of venous poolings at the site of tumor, and 5. visualization of fine neovascularity or tumor stain in prolonged injection angiography.

Removal of the tumor was total in an intracerebral case and intraspinal extradural cases, but was partial in

九州大学脳神経外科

*九州大学放射線科

**久留米大学脳神経外科

〔連絡先：〒889-16 宮崎県宮崎郡清武町大字木原5200, 宮崎医科大学脳神経外科, 福井仁士〕

1978年7月17日受稿

cases of the middle fossa and an intraspinal intramedullary case. It was stressed that correct preoperative diagnosis would be very important because total removal was at all impossible and would therefore not have been indicated in some cases.

Key words: cavernous hemangioma, diagnosis, CT scan, prolonged injection angiography, removal

I はじめに

中枢神経系海绵状血管腫は比較的稀であるが²⁸⁾³⁶⁾, 特発性脳内出血やクモ膜下出血の原因となること¹⁷⁾, 術前の鑑別診断がむずかしく, しかも部位によっては手術操作が著しく困難であること¹⁶⁾などが臨床的に重要な点と考えられる。今日まで個々の症例報告は少なくないが, まとまった症例での検討は少ない¹⁶⁾³²⁾。

著者らは今日まで7例の中枢神経系海绵状血管腫の手術症例を経験したが, この症例を分析し, 診断と治療につき述べ, 特に術前診断における最近の知見につき記載する。

II 対象症例

症例は, 九州大学脳神経外科および久留米大学脳神経外科において直接手術を行った7症例である。その内訳を Table 1 に示すが, 脳内(側脳室内)1例, 中頭蓋窩3例, 脊髓髄内1例, 脊髓硬膜外2例である。九州大学の症例は Case 2 を除く6例であるが, これは1958年より1977年末までに経験したほぼ1,700の中枢神経腫瘍手術症例のうちにみられたものである。

III 結 果

1. 臨床像の検討

入院時の年齢は9~62才にわたっているが, 小児の1例を除くといずれも40才を過ぎて入院している。発症か

ら入院までの期間は7例中4例が5年以上であり, Case 2 では11年に及んでいる。発症は, 急激に生じたものと, 緩徐に生じて進行したものに分けうる。急激に発症したものは腫瘍内または腫瘍外に出血したものと考えられ, 7例中2例がこれに相当した。

臨床症状は多岐にわたるが, 一応次の3型に分類される。すなわち, 1) 局所の圧迫症状, 2) 頭蓋内圧亢進症状, 3) 出血に伴う症状である。局所の圧迫症状としては, 脳内症例での片麻痺, 痙攣発作, 中頭蓋窩症例での第2, 3, 5脳神経症状, 脊髓症例の対麻痺等がこれに相当するものと思われる。頭蓋内圧亢進症状としてうっ血乳頭は Case 1 にのみみられた。出血に伴う症状は, Case 3 と Case 5 にみられたが, 特に Case 5 の頸髄内症例では7年間の経過中4回の出血発作を生じ, 入院時には四肢麻痺の状態であった。Case 6 と7はいずれも50才を過ぎた年齢で発症し, 比較的短期間のうちに症状が進行しているが, 腫瘍内出血の可能性も考えられた。Case 1 では, 1側の難聴・耳鳴があったが, これを裏付ける検査所見は得られなかった。全症例中, 中枢神経以外の血管腫や奇形は認めていない。

2. 神経放射線学的所見の検討

単純X線写真では, 頭蓋内症例の全例と脊髓3症例中2例に異常を認めた。Case 1 の脳内症例では, 鞍背の脱灰を伴う軽度のトルコ鞍拡大がみられ, また, 腫瘍部に一致していくつかの小さな石灰化像がみられた (Numaguchi et al.¹⁶⁾ 論文に掲載)。石灰化像はその他の症例で

Table 1 Cases of cavernous hemangioma of the central nervous system

Case No.	Age & Sex	Site of tumor	Onset & duration of symptoms	Signs & symptoms
1	46y.M.	intracerebral lat. ventricle, R	insidious, 6yrs.	hypacusis, tinnitus, convulsive seizure, hemiparesis, papilledema
2	42y.F.	extracerebral middle fossa, R	insidious, 11yrs.	decreased vision, 3rd, 5th, 7th nerve palsy, amenorrhea etc.
3	62y.F.	extracerebral middle fossa, L	sudden, 2yrs. (1 attack)	headache, 3rd nerve palsy
4	45y.F.	extracerebral middle fossa, L	insidious, 5yrs.	decreased vision, visual field defect, mental dullness
5	9y.F.	intramedullary C4-6	sudden, 7yrs. (4 attacks)	paraparesis—quadriplegia, torticollis, hypesthesia below C7
6	55y.M.	extradural T4-6	insidious, 1.5 mos.	back pain, paraparesis, hypesthesia below T8
7	57y.M.	extradural T5-6	insidious, 5 mos.	back pain, paraparesis, hypesthesia below T10

Table 2 Neuroradiologic findings of cavernous hemangioma of the central nervous system

Case No.	Site	Bone change	Calcif.	RI-Scan	CT-Scan	Angiography
1	intracerebral lateral ventricle	enlargement of sella	+	positive		mainly avascular mass, small venous poolings
2	extracerebral middle fossa	thinning of middle fossa	—	positive		avascular mass
3		ballooning of sella inclination of sella floor	—			avascular mass faint tumor stain
4		defect of middle fossa ballooning of sella	—		positive	vascular mass (by slow injection)
5	spinal intramedullary, C4-6	widening of spinal canal	—			no abnormal findings
6	spinal extradural, T4-6	not remarkable	—			
7	T5-6	thinning of pedicles	—

Fig. 1 a: Precontrast scan. b: Postcontrast scan. CT scan of Case 4 with a cavernous hemangioma of the left middle fossa and suprasellar region. Precontrast scan revealed a slightly high density area in the left middle fossa and suprasellar region, which was markedly enhanced with contrast media.

は認めなかった。中頭蓋窩3症例では、トルコ鞍の変形・拡大あるいは中頭蓋底の菲薄化または骨欠損を認めた。Case 5の脊髓髄内症例では腫瘍部の脊椎管の拡大がみられ、Case 7の脊髓硬膜外症例では腫瘍部の椎弓根の菲薄化がみられた。

脳スキャンは頭蓋内症例のCase 1, 2で行ったが、いずれも腫瘍に一致してhot areaをみた(Case 2の脳スキャンはKawai et al.^{15)論文に掲載)。CTスキャンは中頭蓋窩症例のCase 4にのみ行った。左中頭蓋窩から鞍上部にかけて単純スキャンで脳よりやや高いdensity}

を示し、これは造影剤注入によりむらなく増強された(Fig. 1 a, b)。

脳血管造影は、頭蓋内4症例と頭蓋髄内1症例に行った。Case 1の脳内症例では、動脈相で血管の偏位のみを示すavascular massの所見を呈し、静脈相ではavascular massの中にいくつかの小さな造影剤のpooling (venous pooling or venous lake)が出現した(Numaguchi et al.^{19)論文に掲載)。輸出入血管はまったく描出されなかった。中頭蓋窩症例のCase 2, 3でもavascular massの所見があり、輸入動脈・輸出静脈ともに描出されなかつ}

Fig. 2 a: Antero-posterior view. b: Lateral view. Carotid angiograms of Case 4. Arterial phase. There are marked shifts of vessels suggesting a large mass in the left middle fossa, but no feeding arteries or tumor stain is visualized.

Fig. 3 a: Lateral view obtained by conventional angiography. b: Lateral view obtained by prolonged injection angiography. Carotid angiograms of Case 4. Venous phase. No definite feeding artery or tumor stain is visualized by conventional angiography, but a large vascular stain with venous poolings is seen by prolonged injection angiography.

たが、Case 3 では動脈相後期から静脈相に、腫瘍部に一致してごく淡い不規則な陰影がみられた (Kawai et al.¹⁵⁾ 論文に掲載)。

Case 4 の中頭蓋窩症例はもっとも新しい症例である。通常の総頸動脈造影 (ウログラフィン 8 ml, 注入時間 1 秒) では、左中頭蓋窩から鞍部にかけての大きな avascular mass の所見のみで (Fig. 2 a, b), 静脈相でも明らかな stain や輸出静脈はみられなかった (Fig. 3 a)。そこで内頸動脈にカテーテルを進め、造影剤 15 ml を 4 秒間にわたり手動で注入したところ、内頸動脈の海绵洞部から生じていると思われる多数の小さな輸入血管が造

影され、静脈相では大きな濃染像を形成し、その中に小さな venous pooling 像がみられた (Fig. 3 b)。なお、選択的左外頸動脈造影でも、腫瘍中心部に部分的な造影剤集積像がみられた。

Case 5 の頸髄髄内症例で椎骨動脈造影を行ったが、特に異常所見はなかった。その他 Case 3 では、気脳造影で左傍鞍部腫瘍の所見を得た。脊髄 3 症例ではいずれもマイオジール・ミエログラフィーを行い、Case 5 では髄内腫瘍、Case 6, 7 では硬膜外腫瘍の所見を得た。

3. 症例の術前診断について

病歴、神経学的所見および神経放射線学的所見から考

Fig. 4 Histological section of the tumor of Case 4 obtained by surgery. There are aggregated blood-spaces lined with thin endothelial cells. Some spaces are thrombosed (left upper corner). The features are of typical cavernous hemangioma. H.E. stain, 120 $\times$.

えられた術前の診断を各症例で記載する。

Case 1 の脳内症例は側脳室腫瘍という診断であったが、血管造影でまったく栄養血管がみられず、その質に関してまったく不明であった。中頭蓋窩症例の Case 2 では血管造影で avascular mass であったが、RI スキャンで限局性の良い hot scan を示したため、髄膜腫が考えられた。Case 3 は、腫瘍内出血と考えられる症状急性増悪の病歴を有していたが、血管造影では avascular であり、腫瘍の隣接骨は圧迫による変形と萎縮の像を示し、その質の診断は不明であった。

Case 4 は CT スキャンで vascular mass を示唆する所見が得られたにもかかわらず、通常の脳血管造影では avascular mass の所見しか得られなかったもので、はじめて多めの造影剤をゆっくり注入する血管造影 (prolonged or slow injection angiography) を試みた症例である。これにより vascular mass の所見が得られ、しかも腫瘍内に Case 1 でみた venous pooling 像が観察されたので、はじめて術前に海綿状血管腫の疑いを持った症例である。

Case 5 の頸髄腫内症例は、過去に 4 回の出血既往を有していたので血管奇形が考えられたが、血管造影で異常を指摘できず、質の診断は不明であった。Case 6, 7 はいずれも 50 才代で発症し、しかも発症から入院までの期間が 1.5 カ月と 5 カ月と短かく、ミエログラフィーで硬膜外腫瘍の所見を呈し、術前には血管腫の可能性はまったく考慮していなかった。

4. 手術および術後経過について

手術および手術成績を Table 3 に示した。Case 1 の脳

内症例は全摘できた。中頭蓋窩症例はいずれも海綿静脈洞および上錐体静脈洞と密切な関係を有しているようであり、腫瘍切開は著しい出血を生じ、部分切除に終わった。Case 2 の腫瘍は硬膜内にあったが、Case 3, 4 は硬膜外にあり、同部の脳神経特に動眼神経は腫瘍により挙上された硬膜の直下にあることが確認された。Case 5 の頸髄腫内腫瘍は部分切除に終わった。Case 6, 7 の脊髄硬膜外腫瘍はどちらも全摘できた。しかし Case 6 では、硬膜外に主座を占める血管腫は隣接の骨や筋肉にも入りこんでおり、多量に出血した。

術後の状態および転帰を以下に記す。Case 1 は術後片麻痺は増悪し固定した。Case 2 では腫瘍部分切除により視神経が減圧され、術後視力が回復した。Case 3 は手術により第 3 ~ 6 脳神経が損傷され、その脱落症状は固定した。Case 4 では術後患側の全眼筋麻痺と眼瞼下垂を生じた。しかし数週間後より眼筋麻痺は改善しはじめ、開眼もできるようになった。部分切除に終わった中頭蓋窩 3 症例ともに、術後より現在まで再出血の症状はない。

Case 5 は手術前すでに四肢麻痺に陥っており、手術による症状改善はなく、2 年後肺炎にて死亡した。Case 6, 7 は術後著しい症状改善を示し、労働可能となった。しかし、Case 7 は術後 3 年半で肺癌により死亡した。

IV 考 察

1. 発生頻度・発生部位について

中枢神経系に生ずる動脈瘤以外の血管奇形には、arteriovenous malformation (AVM), cavernous hemangi-

Table 3 Surgical treatment and outcome in cases of cavernous hemangioma of the central nervous system

Case No.	Site	Removal	State after operation	Outcome
1	intracerebral lateral ventricle	total	hemiplegia	alive, 6 yrs.
2	extracerebral middle fossa	partial	recovery of vision	alive, 2 yrs.
3		partial	3rd-6th nerve palsy	alive, 4 yrs.
4		partial	total ophthalmoplegia	alive, 2 mos.
5	spinal intramedullary, C4-6	partial	unchanged	died of pneumonia, 2 yrs.
6	spinal extradural, T4-6	total	markedly improved	alive, 4 yrs.
7	T5-6	total	markedly improved	died of lung cancer 3.5 yrs.

oma, telangiectasis, venous angiomaが知られている²⁸⁾³⁶⁾。そのうち AVM がもっとも頻繁にみられるが、後3者は稀であり、その報告も少ない。Pool and Potts²⁵⁾によれば、中枢神経系の実質性血管腫は動脈瘤以外の血管奇形の約5%を占めると記載している。

Voigt and Yasargil³²⁾は、自験例を含めた164例の頭蓋内海綿状血管腫症例を検討しているが、そのうち76.8%がテント上にあり、そのほとんどが脳内にあったことを記載している。好発部位は Russell and Rubinstein²⁸⁾によれば、Rolandic area の皮質および皮質下あるいは大脳基底核部であり、次いで橋に多いことが指摘されている。海綿状血管腫は脳内出血やクモ膜下出血を生ずることが知られているが、Kravynbühl ら¹⁶⁾が指摘するように、いわゆる“cryptic angioma”が破綻して生じた特発性脳内血腫では、手術時にも剖検時にもその存在を確認しがたい症例があることから、脳内海綿状血管腫の頻度は従来報告されているものより高いことが考えられる。最近 CT スキャンの導入により、直径1cm 前後の血管腫の検出が可能になってきたため、さらに正確な頻度が得られることが期待される。

脳内症例以外では、著者らの症例にもみられるようにいずれの部位にも生ずるものである。このうち著者らの症例で目立つのは、中頭蓋窩の症例である。著者らは最近中頭蓋窩に生じた extracerebral cavernous hemangioma の報告をしたが¹⁵⁾、自験例を含めて集めた8症例⁷⁾⁸⁾¹⁴⁾²¹⁾²²⁾³³⁾中7例が本邦症例で、残りの1例はハンガリーの症例であった²²⁾。本論文の Case 4 がこれに加わると、本邦症例は9例中8例となる。中頭蓋窩 extracerebral の症例が欧米でみられず、本邦に多く報告されている点は興味深い。

Voigt and Yasargil³²⁾は、脳内症例の13.4%は多発性であったと記載しているが、著者らの症例で多発を確認し

たものはない。

2. 発症および臨床症状について

海綿状血管腫は一種の血管奇形であり、生下時より存在していると考えられるが、診断される時期は、Voigt and Yasargil³²⁾は20~50才の間で、30才代にピークがあると報告している。著者らの例では1例のみ10才以前の症例があるが、他は30才以降に発症し、40才以降に診断されている。しかし生前に症状を示さず、剖検により偶然発見された症例もある¹³⁾²¹⁾。海綿状血管腫と類似の venous angioma では、Wendling ら³⁴⁾によると30才以前にほとんどの症例が出血または痙攣発作により発症しており、海綿状血管腫とやや異なった感じがある。

発症は、出血によると考えられる急激な型と、徐々に発症し進行する型があり、臨床症状は、1. 局所の圧迫症状、2. 頭蓋内圧亢進症状、3. 出血に伴う症状に分けられる。海綿状血管腫は真の新生物ではないが、次第に増大する症例が指摘されており³²⁾、著者らの頭蓋内症例ではいずれも大きな腫瘍であった。

症状の面から、中枢神経系の実質性血管腫に特有なものはないといえる。しかし、中枢神経系で出血性病変が生じた時、海綿状血管腫の可能性も考慮に入れておかねばならない。また、出血既往がなく徐々に症状が進行したものにも海綿状血管腫がありうることを知っておかねばならない。脳内症例のうちもっとも多い症状は、頭蓋内圧亢進とジャクソン型てんかんといわれている¹³⁾。

3. 神経放射線学的検査について

単純X線写真では、腫瘍内の石灰化、腫瘍隣接骨の菲薄化・変形、頭蓋内圧亢進によるトルコ鞍の変化などが主要所見である。

腫瘍の石灰化は頭蓋内症例の11%にみられたことが報告されている³²⁾。その形には、小さな石灰化粒が集合した形²⁷⁾³⁰⁾、点状に散在した形¹⁹⁾、輪状の石灰化¹⁰⁾、ある

いは“hemangioma calcificans”とよばれるような著明な形²³⁾を示し、剖検では骨化を生じていた症例も報告されている¹⁸⁾。

腫瘍隣接骨の変化は圧迫萎縮によるものと考えられ、頭蓋骨にも脊椎骨にもみられる。増殖性骨変化が生じていないことが髄膜腫との鑑別に役立つ。しかし注意すべきは海綿状血管腫に骨原性のものがあり、この際は腫瘍部の骨肥厚と蜂窩状構造がみられ、外板に spicula 形成があることが報告されている⁴⁾。

RI スキャンが施行された症例¹¹⁾¹²⁾¹⁵⁾¹⁹⁾²⁴⁾²⁷⁾³⁰⁾ではいずれも陽性の uptake を示し、その陽性像は髄膜腫のものと同様している。Planiol ら²⁴⁾や Runnels ら²⁷⁾は脳内症例で RI スキャンを行い、通常のスキャンで腫瘍は陽性像を示すが、rapid sequence scintiphoto では、腫瘍側の脳は血液循環が減少かつ遅延していることを認め、AVM とは異なっていることを指摘している。

CT スキャンの報告はまだ少ない。Bartlett ら²⁾は頭蓋内症例 3 例を検査し、単純スキャンでは石灰化か血腫を示唆する所見を得、造影効果を認めている。伊藤ら⁹⁾は、頭蓋窩隆部の症例で、単純スキャンで high density area がみられ、造影スキャンで強く増強されたことを報告している。著者らの Case 4 は、上記の症例とほぼ一致している。ただ、海綿状血管腫内には広範な血栓を有する症例²⁸⁾や血腫を含むこともあるので、造影効果にはばらつきがあることが予想される。

脳血管造影の報告は少なくないが、血管性腫瘍でありながら、血管に富む造影所見を報告したものは少ない。Numaguchi ら¹⁹⁾は、血管造影が行われた 31 例の脳内症例を文献から収録し、20 例では異常がみられないか、avascular mass の所見のみがあったことを指摘している。Kawai ら¹⁵⁾は自験例を含む中頭蓋窩 extracerebral の 6 症例で、1 例⁸⁾を除き avascular mass の所見が主体であったことを報告している。すなわち、頭蓋内海綿状血管腫の血管造影では、大多数の症例で輸入動脈や輸出静脈はみられず、腫瘍濃染像もみられていないといえる。Sweasey Powers³¹⁾や Russell and Rubinstein²⁸⁾は病理組織学的に検討した症例で、海綿状血管腫には大きな輸入動脈や輸出静脈がみられなかったと報告している。

頭蓋内の海綿状血管腫がなぜ avascular に造影されることが多いか、まだよくわかっていない。Bogren ら³⁾や Kamrin ら¹³⁾は、輸入動脈が細いこと、血液循環が遅延していること、広範な血栓を伴っているものがあることに原因を求めている。

一方、異常な血管像や stain を示した頭蓋内症例の報告もみられる。動脈相では、Huber⁶⁾はテントに生じた

症例で後大脳動脈の枝が輸入血管となっていたことを報告し、Jonutis ら¹²⁾は頭頂葉深部の症例で後脈絡叢動脈から、伊藤ら⁸⁾⁹⁾は中頭蓋窩症例で inferior cavernous sinus artery、頭蓋窩隆部症例で中硬膜動脈から血流を受け、Bartlett ら²⁾は前頭葉内の症例で動脈相に異常血管をみたと報告している。

毛細管相および静脈相では、Jonutis ら¹²⁾は新生血管、stain や静脈の early filling をみたこと、Liliequist¹⁷⁾は capillary blush と静脈の early filling をみたことと記載している。Krayenbühl ら¹⁶⁾は avascular mass の中に造影剤の“tiny strand”をみたこと、Segall ら³⁰⁾は造影剤の“vague puddling”をみたことと記載している。Numaguchi ら¹⁹⁾は、avascular mass の中に“venous pooling or lake”の像をみたこと（本症例 Case 1）、伊藤ら⁸⁾⁹⁾は、中頭蓋窩症例で薄い stain の中に静脈瘤様の陰影をみ、頭蓋窩隆部症例でも同様の造影剤の“pooling or laking”をみたことを報告している。著者らは、この腫瘍部の“venous pooling”の像を、海綿状血管腫に特徴的な像と考えている。

その他 Bogren ら³⁾は腫瘍部そのものに異常血管を認めなかったが、拡張した輸出静脈をみたこと、Roberson ら²⁶⁾は、avascular mass の周りに静脈の early filling と拡張した輸出静脈をみたことを述べている。ただ、Roberson 例は剖検にて海綿状血管腫に telangiectasis が合併していたことが確認された。

以上のように、海綿状血管腫にみられる異常血管像は多岐にわたっているが、その原因の一つには Roberson らの症例のように他の血管奇形を合併していることがありうる。Russell and Rubinstein²⁸⁾も、同様の合併例を病理組織学的に確認している。

一方、Bogren ら³⁾や Kamrin ら¹³⁾が指摘したように、本来血管性腫瘍である本腫瘍の造影を不良にする要因があり、これが造影像も不安定にしている可能性が考えられる。著者らの Case 4 で施行した prolonged (or slow) injection angiography は、この要因を克服する方法であることが考えられる。この方法により、通常の脳血管造影では認めなかった輸入血管、腫瘍濃染像、venous pooling がよく描出された。RI スキャンや CT スキャンで血管に富む腫瘍が考えられるのに、通常の脳血管造影で avascular mass の所見しか得られない時、試みてよい方法と考えている。その詳細は別に報告する予定である²⁰⁾。

ここで海綿状血管腫と鑑別すべき疾患として、venous angioma と telangiectasis の造影所見に触れておく。Venous angioma は動脈相で異常を認め難く、静脈相で caput medusae 様の小さな medullary vein が集合し、大

Table 4 Evidence suggestive of cavernous hemangioma of the central nervous system

1. History
 - episode of hemorrhage in the central nervous system
2. Plain X-ray
 - a. localized bony erosion or defect
 - b. presence of calcification at the site of tumor
3. RI scan
 - localized hot area
4. CT scan
 - high density area with marked contrast enhancement
5. Angiography
 - a. avascular or hypovascular mass lesion
 - b. no or poor visualisation of feeding artery
 - c. presence of small venous poolings or tumor stain
 - d. visualization of fine neovascularity or tumor stain by prolonged injection angiography

きな静脈となり、脳を貫いて表在静脈や静脈洞につながる事が報告されている³⁴⁾³⁵⁾。Telangiectasisは血管造影で認め難いことも多いが、造影の intermediate stage で blush が出現し、静脈相で拡張した channel をみるものと報告されている²⁶⁾。

以上、症候学的・神経放射線学的な面から海綿状血管腫を示唆する所見を Table 4 に示した。

4. 治療について

Voigt and Yasargil¹⁹²⁾ は、頭蓋内の海綿状血管腫では技術的に可能な限り絶対的な手術適応があると述べている。特に、出血既往を有するものや頭蓋内圧亢進症状を呈したものは摘出すべきであろう。文献にみられる脳内症例では比較的大きな腫瘍でも予想外に手術時の出血は少なく、容易に摘出できたと記載した報告がある¹¹⁾¹⁰⁾¹²²⁾²⁸⁾³⁰⁾。しかし Dandy⁶⁾ はこの腫瘍は非常に血管に富むので術中被膜を切開してはならないと述べており、Runnels ら²⁷⁾ の症例では部分切除に際して著しく止血困難であったことを報告している。手術はできるだけ全体を一塊として摘出することが望ましい。

一方中頭蓋窩の症例では、Kawai ら¹⁵⁾ が指摘したように全摘できた症例はほとんどなく、手術死は9例中2例に及んでいる。術前に確定診断ができれば、手術適応がないと判断される症例もありうるであろう。ただ、著者らの中頭蓋窩3例ともに部分切除後現在まで出血した徴候は出現しておらず、しかも Case 2 では視神経の減圧により視力の回復が生じていることから、部分切除が適応となる症例も考えられる。

いずれにしても、術前にできるだけ正確な情報を得ておくことが大切である。

V 結 語

1. 7例の中中枢神経系の海綿状血管腫手術症例を経験し、診断と治療につき検討した。
2. 症候学的に特有のものはないが、中枢神経系での出血に際して本疾患も考慮すべきである。また、徐々に症状が進行したものにも本疾患がありうる。
3. RI スキャンや CT スキャンでは血管に富む腫瘍としてみられるが、通常の脳血管造影では多くの場合 avascular mass の所見しか得られない。
4. Prolonged (or slow) injection angiography により vascular tumor として描出されることが期待される。
5. 静脈相での腫瘍部の venous pooling 像は重要な診断の手がかりと考えられる。
6. 治療は全摘が望ましいが、中頭蓋窩症例などで全摘できないものがある。しかし部分切除でも症状改善を得るものがある。

本論文の要旨は、第36回日本脳神経外科学会総会（昭和52年、大阪）にて発表した。

文 献

- 1) 青木秀暢，小柏元英，涌谷 清，伊藤悦夫：大脳海綿状血管腫の一例。脳神経 23：927-932，1971
- 2) BARTLETT, J. E. & KISHORE, P. R. S.: Intracranial cavernous angioma. *Am J Roentgenol* 128: 653-656, 1977
- 3) BOGREN, H., SVALANDER, C. & WICKBOM, I.: Angiography in intracranial cavernous hemangiomas. *Acta Radiol* 10: 81-89, 1970
- 4) COURVILLE, C. B., VOGEL, P. J. & MURIETTA, A. J., JR.: Angiomas of the cranial vault: Report of case with some remarks as to their pathology and surgical treatment. *Bull Los Angeles Neurol Soc* 13: 1-14, 1948
- 5) DANDY, W. E.: Practice of Surgery. Vol. 12, Hagerstown, Maryland, W. F. Prior Company Inc. 1953 (石島論文より引用)
- 6) HUBER, P.: Gefäßmissbildungen und Gefäßstumoren der A. carotis externa und der Dura. *Fortschr Roentgenstr* 109: 325-335, 1968
- 7) 石島 裕，松村 浩，景山直樹：頭蓋内海綿状血管腫の2例。日外宝 35：748-754，1966
- 8) 伊藤寿介，高橋正康，斉藤 明，本多 拓，矢嶋浩二，植木幸明：脳血管造影上 feeindg artery と腫瘍濃染像のみられた中頭蓋窩の海綿状血管腫。臨放 22：339-344，1977

- 9) 伊藤寿介, 佐藤 勇, 谷村憲一, 栗田 勇, 中井 昂: Convexity cavernous hemangioma の脳血管造影および CT 所見. 臨放 23: 204-205, 1978
- 10) JAIN, K. K.: Intraventricular cavernous hemangioma of the lateral ventricle. Case report. *J Neurosurg* 24: 762-764, 1966
- 11) JAIN, K. K. & ROBERTSON, E.: Recurrence of an excised cavernous hemangioma in the opposite cerebral hemisphere. *J Neurosurg* 33: 453-456, 1970
- 12) JONUTIS, A. J., SONDHEIMER, F. K., KLEIN, H. Z. & WISE, B. L.: Intracerebral cavernous hemangioma with angiographically demonstrated pathologic vasculature. *Neuroradiology* 3: 57-63, 1971
- 13) KAMRIN, R. B. & BUCHSBAUM, H. W.: Large vascular malformation of the brain not visualized by serial angiography. *Arch Neurol* 13: 413-420, 1965
- 14) 川口 進, 大沢武志: 頭蓋底から発生した海綿状血管腫の一例. 臨床神経 5: 705-708, 1965
- 15) KAWAI, K., FUKUI, M., TANAKA, A., KURAMOTO, S. & KITAMURA, K.: Extracerebral cavernous hemangioma of the middle fossa. *Surg Neurol* 9: 19-25, 1978
- 16) KRAYENBÜHL, H. & SIEBENMANN, R.: Small vascular malformations as a cause of primary intracerebral hemorrhage. *J Neurosurg* 22: 7-20, 1965
- 17) LILIEQUIST, B.: Angiography in intracerebral cavernous hemangioma. *Neuroradiology* 9: 69-72, 1975
- 18) McCORMICK, W. F., HARDMAN, J. M. & BOULTER, T. R.: Vascular malformations ("angiomas") of the brain, with special reference to those occurring in the posterior fossa. *J Neurosurg* 28: 241-251, 1968
- 19) NUMAGUCHI, Y., FUKUI, M., MIYAKE, E., KISHIKAWA, T., IKEDA, J., MATSUURA, K., TOMONAGA, M. & KITAMURA, K.: Angiographic manifestations of intracerebral cavernous hemangioma. *Neuroradiology* 14: 113-116, 1977
- 20) NUMAGUCHI, Y., KISHIKAWA, T., FUKUI, M., SAWADA, K., KITAMURA, K., MATSUURA, K. & RUSSELL, W. J.: Prolonged injection angiography for diagnosing intracranial cavernous hemangioma. (submitted for publication)
- 21) 小笠原定則, 中沢一臣, 桂 佐元, 大泉早苗: 頭蓋底にみられた海綿状血管腫の一例検例. 脳神経 25: 735-737, 1973
- 22) PÁSZTOR, E., SZABÓ, G., SLOWIK, F. & ZOLTÁN, J.: Cavernous hemangioma of the base of the skull. Report of a case treated surgically. *J Neurosurg* 21: 582-585, 1964
- 23) PENFIELD, W. & WARD, A.: Calcifying epileptogenic lesions. Hemangioma calcificans: Report of a case. *Arch Neurol Psychiatr* (Chic) 60: 20-36, 1948
- 24) PLANIOL, T. & AKERMAN, M.: La gamma encéphalographie dans les anévrysmes artérioveineux sus-tentoriels. Etude de 54 cas. *Presse med.* 73: 2205-2210, 1965 (cited by Runnels et al.)
- 25) POOL, J. L. & POTTS, D. G.: Aneurysms and arteriovenous anomalies of the brain. Diagnosis and treatment. 1st Ed., New York: Harper & Row, 1965, 463 pp
- 26) ROBERSON, G. H., KASE, C. S. & WOLPOW, E. R.: Telangiectases and cavernous angiomas of the brain stem: "Cryptic" vascular malformations. Report of a case. *Neuroradiology* 8: 83-89, 1974
- 27) RUNNELS, J. B., GIFFORD, D. B., FORSBERG, P. L. & HANBERY, J. W.: Dense calcification in a large cavernous angioma: Case report. *J Neurosurg* 30: 293-298, 1969
- 28) RUSSELL, D. S. & RUBINSTEIN, L. J.: Pathology of tumours of the nervous system. 3rd ed., London, Edward Arnold, 1971, pp 93-98
- 29) SCHNEIDER, R. C. & LISS, L.: Cavernous hemangiomas of the cerebral hemispheres. *J Neurosurg* 15: 392-399, 1958
- 30) SEGALL, H. D., SEGAL, H. L., TEAL, J. S., RUMBAUGH, C. L. & BERGERON, R. T.: Calcifying cerebral cavernous hemangioma with brain scan and angiographic findings. *Neuroradiology* 7: 133-138, 1974
- 31) SWEASEY POWERS, W. T.: Ein Fall von Angioma Cavernosum des Gehirns. *Z Neurol Psychiatr* 16: 487, 1913 (cited by Russell and Rubinstein)
- 32) VOIGT, K. & YASARGIL, M. G.: Cerebral cavernous hemangiomas or cavernomas. *Neurochirurgia* 19: 59-68, 1976
- 33) 渡辺三喜男: 土耳其鞍外海綿状血管腫の一例. 日外宝 20: 473-477, 1943
- 34) WENDLING, L. R., MOORE, J. S., JR., KIEFFER, S. A., GOLDBERG, H. I. & LATCHAW, R. E.: Intracerebral venous angioma. *Radiology* 119: 141-147, 1976
- 35) WOLF, P. A., ROSSMAN, N. P. & NEW, P. F. J.: Multiple small cryptic venous angioma of the brain mimicking cerebral metastases. A clinical, pathological and angiographic study. *Neurology* (Minneapolis) 17: 491-501, 1967
- 36) ZÜLCH, K. J.: Biologie und Pathologie der Hirngeschwülste, Handbuch der Neurochirurgie, Vol. 3, Berlin-Heidelberg-New York, Springer, 1956, pp 558-559