骨化した小脳内血腫の一例

長谷川 毅・熊川 孝三*・今井 洋輔**

溝口 藤雄**・尾原 義悦**

Ossified Intracerebellar Hematoma

TAKESHI HASEGAWA, KOZO KUMAKAWA*, YOSUKE IMAI**,

FUJIO MIZOGUCHI** and YOSHIETSU OHARA**

Department of Neurosurgery, Fujisawa City Hospital

**Department of Neurosurgery, Juntendo University*

***Department of Neurosurgery, Saiseikai Kawaguchi General Hospital*

Summary

A 60 year-old man with late cortical cerebellar atrophy was found to have calcified mass in the right side of the posterior fossa on skull films. Histological examination of the successfully excised mass revealed typical structure of the compact bone and there was nothing suggestive of tumor growth, vascular anomaly or congenital anomaly. Discussion is made with a review of the literature and it is concluded that intracerebellar hematoma has been ossified.

Key words: intracerebellar hematoma, ossified hematoma

I はじめに

脳内血腫が石灰化したという報告例は稀に散見するが、脳内血腫の骨化症例についてはまだその報告を見ない。

最近我々は、小脳内血腫が骨化したと思われる症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

II 症 例

患者：60歳、男性、工具。

主訴：歩行障害。

家族歴：父方の祖母が、てんかんのため投薬治療を受けていた。

既往歴：出産は正常分娩。16歳頃より全身痙攣発作が出現し、近医にて大発作てんかんと診断され、抗痙攣

剤の投与を受けていた。しかし不規則な服薬をしており、痙攣発作が年に数回の割で続いていた。45歳頃より市販の diphenylhydantoin (D.P.H.) を買い求め服用し、以来痙攣発作はなかったという。

昭和51年3月25日、工作中、繊維の丸巻きで左前頭部を打撲した。局部痛があったため、近医にて受診、頭蓋X線単純写等の検査を受けたが異常なしといわれた。

現病歴：昭和51年12月初旬より歩行に際し、ふらつくようになり某病院にて受診、頭蓋X線単純写にて後頭蓋窩石灰化像を指摘され、12月11日、済生会川口総合病院脳神経外科へ転入院した。

入院時現症：

1) 一般的所見：体格小、栄養状態良好で全身的に特記すべき所見はない。

2) 神経学的所見：意識清明、構語障害があり発語は

藤沢市民病院脳神経外科

*順天堂大学脳神経外科

**済生会川口総合病院脳神経外科

〔連絡先：〒113 東京都文京区本郷2-1-1、順天堂大学脳神経外科、長谷川毅〕

1978年1月26日 受稿

緩解である。眼振はなく、その他の脳神経にも異常はない。四肢の運動麻痺はなく、深部腱反射は正常、病的反射もない。知覚麻痺もない。小脳失調性歩行があり、歩行は不安定であり、つぎ足歩行をさせると左右にふらつく。また両上肢の軽度の企図振せんがある。

3) 一般検査所見：血液一般、血清電解質、尿、肝機能に異常はない。血清梅毒反応陰性。心電図、胸部X線単純写にも異常はない。

4) 髄液所見：腰椎穿刺にて圧は55 mmH₂O、外観は水様透明、細胞数1/3、蛋白量34 mg/dl、糖定量59 mg/dl、Cl 126 mEq/l、Queckenstedt test 陰性。

5) 脳波：8～9 c/s の不規則なα波が後頭優位に出現するが、θ波の混入も広汎にやや多くみられる異常基礎波型である。傾眠状態では、右または左前頭部に3 c/s前後の spike & wave様波形が散発する。過呼吸では1分30秒より build up がかなりみられ、4分30秒終了後もθ-burst 状態をなして3分間持続し、時に前頭、側頭部、右または左に3 c/s spike & wave様の波形も混入する。

6) 頭蓋X線単純写：右後頭蓋窩に、大小2個の辺縁の不規則な石灰化像を認める (Fig. 1a, b)。

7) 脳血管写：右逆行性上腕動脈写を行った。内頸動脈領域に異常所見はない。椎骨脳底動脈領域においては、異常石灰化像の周辺が avascular であるが、各動脈および静脈の走行に異常はなく、また異常血管も存在しない (Fig. 2)。

8) 気脳写：第4脳室がごく軽度左方偏位しているほ

かは、脳室拡大、脳室変形等の異常を認めない。

9) CT スキャン：右後頭蓋窩に大小2個の high density area が認められ、それらは小範囲の low density area によってかこまれている。この high density area のX線吸収度は、骨のそれに一致する。造影剤静注により、enhancement は認められない。第4脳室はごく軽度左方偏位を示す (Fig. 3)。

手術所見：坐位にて正中皮膚切開により、後頭下開頭術を行った。皮膚および骨に異常所見はない。硬膜の緊張はまったくなく硬膜を切開すると、びまん性に高度に萎縮した左右小脳半球および虫部があらわれた。右小脳半球の下1/3、ほぼ正中線の部位は黄色を呈し触診にて皮質下に固い腫瘤を触れた。この部の小脳皮質に小切開

Fig. 2 Right retrograde brachial angiography showing no abnormal vessels and normal course of the arteries.

a

b

Fig. 1 Plain skull film showing two calcified masses in the right side of the posterior fossa.

Fig. 3 CT scan demonstrating two high density areas in the right side of the posterior fossa.

を加えると、皮質下 0.5 cm に黄白色を呈する骨様硬の腫瘍があらわれた。腫瘍周囲の小脳組織は変色しており、腫瘍とは容易に剝離でき、腫瘍を一塊として摘出した (Fig. 4)。腫瘍周囲小脳組織の一部も病理学的検査の目的で切除した。この腫瘍の内方に、前者とは連続性のないもう一個の小さな腫瘍があり、これも一塊として摘出した。

肉眼的所見：重量各々 5 g, 2 g の黄白色を呈する固い腫瘍である (Fig. 5)。

組織学的所見：摘出した腫瘍は、緻密骨の構造を示す (Fig. 6a)。腫瘍周囲小脳組織は、プルキンエ細胞、顆粒細胞の脱落があり、また石灰沈着を認める変性した小脳構造を示す (Fig. 6b)。腫瘍性増殖や血管異常を示す所

Fig. 4 Operative photograph: Removal of the mass. See marked cerebellar atrophy.

Fig. 5 Excised specimens.

見はまったくない。

術後経過：術後経過は良好であったが、神経学的には術前とまったく変わらないまま昭和52年2月12日に退院した。

a

b

Fig. 6 a: Histology of the excised mass shows typical structure of the compact bone. (H.E. $\times 100$)

b: Histology of the neighboring tissue shows degenerated cerebellar tissue with calcium deposit. (H.E. $\times 100$)

III 考 按

本症例において、患者は歩行障害を主訴として来院し、神経学的には小脳失調性歩行、構語障害、企図振せん等の小脳症状を呈した。頭蓋X線単純写にて右後頭蓋窩に異常石灰化像が発見されたが、症状発現9カ月前に撮影した頭蓋単純写にもまったく同じ石灰化像があることが確かめられた。手術時には高度のびまん性小脳萎縮が認められ、右小脳半球内腫瘍摘出後も、症状はまったく不変のままであった。これらの事実を合わせ考えると、本症例における小脳症状はおそらく小脳変性により発現したものであり、腫瘍発見は偶発的なものであったかもしれない。

以上の仮定に沿って考えると、遺伝的關係が認められず、中年以降小脳症状の緩徐な発現をみた本症例は、晩発性皮質性小脳萎縮症である可能性が高い。しかしオリブ小脳萎縮症との厳密な鑑別は、今後の経過を追わないと不可能である。また本症例患者はD.P.H.を40数年にわたり、かつそのうち15年間は市販のD.P.H.を自分で買い求めて服用しており、過量のD.P.H.を服用したと想像される。D.P.H.の副作用として小脳に不可逆的なびまん性萎縮をおこし、小脳性失調、構語障害、眼振等の小脳症状を呈することはよく知られている³⁾⁴⁾⁶⁾⁷⁾¹⁰⁾¹¹⁾¹²⁾。本症例の小脳病変もこのD.P.H.中毒によるものであるという可能性も捨てきれないが、組織学的検索がなされない限り、断定的な結論を下すのはむずかしい。

さて摘出された腫瘍についてであるが、前述したように皮膚、後頭骨、硬膜に異常所見がなく、腫瘍は小脳半球内に周囲の組織とは特別な関連もなく2個存在していた。組織学的には腫瘍は緻密骨の構造を示し、周囲小脳組織は石灰沈着を含む変性小脳組織であった。このように腫瘍性増殖、血管異常、先天性異常等を示す所見はまったくない。しからば、この腫瘍は何に由来するのだろうか。

身体諸臓器内の出血巣が、骨化する場合があるということはひろく知られている。本症例において既往歴としてはっきりとえられてはいないが、患者は16歳頃より30年間にわたり、全身痙攣発作を繰り返しており、その際に頭部外傷を伴ったことも数多くあったろうと思われる。そして小脳内に小出血をおこした可能性も十分に考えられる。またX線学的、組織学的に証明されなかったが、いわゆる特発性小脳内出血があった可能性も捨てきれない。この出血巣が器質化し骨化したとは考えられないだろうか。しかし硬膜外血腫や硬膜下血腫が骨化した

という報告例はごく稀にあるが、脳内血腫が骨化した症例の報告例はまったく見当たらない。

硬膜外血腫の場合、その骨化は出血がおきてから数週間以内にすでに始まり、骨化は血腫内からではなく、血腫が硬膜に接する所から始まるという。硬膜は内外膜2層よりなり、このうち外膜は頭蓋骨の内骨膜として存在し、また頭蓋骨膜へも移行する。このような外膜の細胞の関与により、血腫の硬膜側から骨化が生ずるのではないかとIwakumaは述べている⁸⁾⁹⁾¹⁸⁾。

これに対し硬膜下血腫においては、年余に及ぶ血腫の消退過程において、血腫被膜内に退行性変化がおき被膜内のみならず血腫内までヒアリン化、石灰化、さらには稀に骨化まで進むことがある。この場合骨化はヒアリン化、石灰化と続く血腫の器質化の最終過程にみられ、Langによると石灰沈着は組織を刺激し、結合組織の化生的発育をうながし骨化が生ずるという¹²⁾¹⁴⁾。

前述したように、脳内血腫が骨化したという報告例はないが、脳内血腫が長年月をへて石灰化するということは知られており、手術的に摘出し確かめられた例は今まで5例を数える⁵⁾¹²⁾¹³⁾¹⁵⁾¹⁶⁾。Grantham & Smolikの例においての組織学的検索では、壊死をおこした古い凝血塊を囲んで厚いヒアリン化、石灰化した結合組織性の被膜が存在していたという。このような事実を考えあわせ、我々は本症例は小脳内出血巣が、ヒアリン化、石灰化等をへて器質化の最終過程において骨化したものであろうと推論を下した。

IV ま と め

小脳内の組織学的には緻密骨の構造を示す腫瘍を摘出する経験を得た。それが小脳内出血巣に由来するものであろうと文献的考察を加えつつ結論を下した。

稿を終るにあたり、御校閲をいただいた順天堂大学脳神経外科石井昌三教授に深甚なる謝意を表します。

文 献

- 1) AFRA, D.: Ossification of subdural hematoma. Report of two cases. *J Neurosurg* 18: 393-397, 1961
- 2) CHUSID, J. G. & DE GUTIÉRREZ-MAHONEY, C. G.: Ossifying subdural hematoma. *J Neurosurg* 10: 430-434, 1953
- 3) DANN, M.: Number of purkinje's cells after diphenylhydantoin intoxication in pigs. *Arch Neurol* 22: 64-67, 1970
- 4) DANN, M.: The number of purkinje cells after

- diphenylhydantoin intoxication in monkeys. *Epilepsia* 11: 199-205, 1970
- 5) GRANTMAN, E. G. & SMOLIK, E. A.: Calcified intracerebral hematoma. *Ann Surg* 115: 465-468, 1942
 - 6) HABERLAND, C.: Cerebellar degeneration with clinical manifestation in chronic epileptic patients. *Psychiatr Neurol (Basel)* 143: 29-44, 1962
 - 7) HOFMANN, W. W.: Cerebellar lesions after parenteral dilantin administration. *Neurology* 8: 210-214, 1958
 - 8) IWAKUMA, T. & BRUNGRABER, C. V.: Chronic extradural hematomas. *J Neurosurg* 38: 488-493, 1973
 - 9) IWAKUMA, T. & BRUNGRABER, C. V.: Extradural ossification following an extradural hematoma. *J Neurosurg* 41: 104-106, 1974
 - 10) KOKENGE, R. et al.: Neurological sequelae following dilantin overdose in a patient and in experimental animals. *Neurology* 15: 823-829, 1965
 - 11) KUTT, H. & McDOWELL, F.: Intravenous diphenylhydantoin in experimental seizures. *Arch Neurol* 18: 465-471, 1968
 - 12) LEVIN, J. J.: Intracerebral calcification. *Br J Surg* 14: 215-223, 1926
 - 13) LUSIGNAN, F. W. & GROSS, G. O.: Calcified intracerebral hematoma. *Ann Surg* 132: 268-272, 1950
 - 14) McLAURIN, R. L. & McLAURIN, K. S.: Calcified subdural hematomas in childhood. *J Neurosurg* 24: 648-655, 1966
 - 15) MILLER, E. A.: Calculi within the brain. *Surg Gynecol Obstet* 34: 786-789, 1922
 - 16) PETITPIERRE, M.: Zur Symptomatologie und operativen Entfernung intracerebraler Kalkherde. *Beitr Klin Chir* 140: 532-538, 1926
 - 17) UTTERBACK, R. A.: Parenchymatous cerebellar degeneration complicating diphenylhydantoin therapy. *Arch Neurol Psychiatr* 80: 180-181, 1958
 - 18) WHISLER, W. W. & VORIS, H. C.: Ossified epidural hematoma following posterior fossa exploration. *J Neurosurg* 23: 214-216, 1965