静脈洞に沿って内頸静脈にまで進展した parasagittal meningioma の 1 例

今井 知博・阿部 弘・伊古田俊夫・会田 敏光
中川 翼・田代 邦雄・都留美都雄

Parasagittal Meningioma Extending through the Sinus into the Internal Jugular Vein

Case Report

Tomohiro IMAI, Hiroshi ABE, Toshio IKOTA, Toshimitsu AIDA,
Yoku NAKAGAWA, Kunio TASHIRO, Mitsuo TSURU

Department of Neurosurgery, Hokkaido University, Sapporo

Abstract

A case of parasagittal meningeoma which extended through the sinus into the internal jugular vein and presented as a neck mass was reported. The patient was a 37-year-old woman, admitted with a right-sided neck mass. CT scan with constant enhancement revealed a high-density mass at the right parietooccipital and parasagittal areas including the superior sagittal sinus, confluens, and lateral sinus. Right parietooccipital craniotomy was performed and the tumor of the parietooccipital and parasagittal area was removed. The posterior third of the superior sagittal sinus and right lateral sinus, which were filled with tumor, were also removed. Six months later, a second operation consisting of right occipital craniotomy with suboccipital craniectomy was performed and the tumor of the tentorium was removed. The sigmoid sinus, jugular bulb, and internal jugular vein which were filled with tumor were also removed. Both intracranial and extracranial tumors were histologically diagnosed as transitional type meningeoma without obvious histological malignancy. The mechanism of tumor extension of this patient was extremely specific. Venous transmission of tumor cells must have played an important role. Five cases of meningeoma presenting as a neck mass along the nerves or lymph nodes have been reported in the literature. However, a growth of meningeoma in the internal jugular vein as a neck mass has not hitherto been reported.

Key words: parasagittal meningeoma, extracranial extension, neck mass

I はじめに

Parasagittal meningeoma が静脈洞内へ浸潤することはよく知られているが、それが多発生となることはまれである¹²⁾。また頭蓋内の meningeoma が頭蓋外へ転移することはまれではあるが報告されている^{1,7-9,16)}。しかし頸静脈内への播種はかつて報告をみない。今回我々は parasagittal meningeoma が superior sagittal sinus 内へ浸潤し、連続し

た形で内頸静脈内に腫瘤を形成した症例を経験した。その病変の拡がりやきわめて特異であるため、その mechanism に関して若干の文献的考察を加えて報告する。

II 症 例

＜患者＞ 37才、女性
家族歴：特記すべきことなし
既往歴：1971年胆石症で1ヵ月入院

北海道大学脳神経外科

Address reprint requests to: T. Imai, M. D., Department of Neurosurgery, Hokkaido University, North-15, West-7, Kita-ku, Sapporo 060.

受稿 1982年9月1日 受理 1983年1月5日

Fig. 1 Enhanced CT scans. A: Axial tomographs revealing a huge high density mass in the parietooccipital area with midline shift to the left. Another high density masses were also observed at the confluens and the right lateral sinus. B: Sagittal reconstruction (lower) revealing a high density mass at the parietooccipital region. An abnormal high density mass is also observed at the superior sagittal sinus and confluens. C: Coronal reconstruction (lower) revealing a high density mass at the parietooccipital area, confluens, and lateral sinus. These masses appearing isolated from each other on CT scan.

現病歴：1980年1月，右側頸部に腫瘤を触れるようになり徐々に増大した。1981年1月，右眼がかすむ感じが出現し，同年2月末には右側の頭重感が出現した。3月3日某脳外科を受診し，CT スキャンを施行され，rt. falx meningioma を疑われて3月18日当科に入院となった。

入院時所見：

＜一般所見＞ 右側頸部に長さ約7cm，直径約2.5cmのソーセージ様の腫瘤を触知した。

＜神経学的所見＞ 両側眼底に高度のうっ血乳頭を認めたが，他の脳神経系，運動，知覚系，小脳平衡機能などに異常を認めなかった。

＜検査所見＞ 肝機能検査でGPTが46IUと軽度上昇していたが，他の項目は正常であった。胸部X線にて左肺紋部に石灰化を認めたが，血液，尿，心電図などの検査では異常を認めなかった。

頭蓋単純撮影：トルコ鞍の拡大，後床突起の脱灰，血管溝の拡大およびrt. parietal area に骨の菲薄化を認めた。

CT スキャン(with contrast enhancement)：Midline のlt. side への shift を認め，rt. parietooccipital area に大きな high density mass を認めた。また confluens, rt. lateral sinus から tentorium にかけても連続的に high density mass を認めた (Fig. 1A)。Sagittal reconstruction では parietooccipital area に high density mass を認めた。また

superior sagittal sinus および confluens にも high density area を認め，tumor による invasion が疑われた (Fig. 1B)。Coronal reconstruction では，rt. parietooccipital area の mass と confluens および rt. lateral sinus の mass はそれぞれ独立した広がりを持つ結節を形成していた (Fig. 1C)。

脳血管撮影：右内頸動脈撮影の静脈相では superior sagittal sinus の後方1/3および rt. lateral sinus は filling されず，tumor による invasion が疑われた。Straight sinus から lt. lateral sinus については faint ながら filling されている (Fig. 2)。右外頸動脈撮影動脈相では，middle meningeal artery より parietal の parasagittal area および tentorium の lateral portion に tumor stain を認めた。これらの tumor stain についてみると，parasagittal area の stain がより著明であり，頭蓋単純撮影における骨の菲薄化の部位とも一致していることから，tumor の originating site としては parasagittal area の可能性が強いと考えられた (Fig. 3)。逆行性の cervical venography では，internal jugular vein は膨大し，内腔に defective shadow を認め，tumor による invasion が疑われた (Fig. 4A)。以上の神経放射線学的所見を総合すると，tumor は rt. parasagittal area から rt. parietooccipital area を中心に，superior sagittal sinus を介して confluens, lateral sinus, jugular bulb, internal jugular vein へと進展していると考えられた。このため手術は2

Fig. 2 Right internal carotid angiographs. Venous phase. Frontal (A), lateral (B) projection. Posterior third of the superior sagittal sinus and right lateral sinus are not filled. The straight sinus and left lateral sinus are poorly filled.

Fig. 3 Right external carotid angiographs. Arterial phase. Frontal (A), lateral (B) projection. Tumor stain is observed at the right parasagittal area and the lateral portion of the tentorium which were supplied by the anterior and parietal branches of the middle meningeal artery.

Fig. 4 Retrograde cervical venographs. A: Before first operation. The internal jugular vein is dilated. Shadow defect is observed in the internal jugular vein, jugular bulb, and sigmoid sinus. These findings indicate tumor invasion. B: Before second operation. Internal jugular vein is occluded at the C₇ vertebral level.

回に分けて行った。

1回目手術：1981年4月8日，右頭頂後頭開頭下に parasagittal area, parietooccipital area の tumor を全摘した。この際 superior sagittal sinus, rt. lateral sinus 内には tumor の invasion が認められ，superior sagittal sinus の後方1/3および rt. lateral sinus は切除した。Confluens については tumor の invasion が疑われたが，術前の angiography 上 straight sinus, lt. lateral sinus が faint ではあるが filling されていたので，同部への手術操作は控えた。

1回目手術後経過：左同名半盲を認めたが，ほかに神経学的脱落症状は認められなかった。

2回目手術前の cervical venography：Internal jugular vein は1回目手術前には内腔が不整ながらも造影されていたが，今回は C₇ 椎体レベルで完全に閉塞していた (Fig. 4B)。

2回目手術：右後頭および後頭下開頭下に tentorium area の tumor を摘出し，その後 sigmoid sinus, jugular foramen を開放して sinus を切開し，同部を充満していた暗紫赤色の tumor を摘出した。この際 mastoid process の一部を切除したが，中に tumor の invasion を認めたためこれを可及的に除去した。次に右側頸部において著しく膨大した internal jugular vein を，頭側は jugular foramen 部より，心臓側は正常と思われる部分まで *en bloc* に全摘した (Fig. 5)。

組織所見：1回目手術時に得られた組織標本では，円形または楕円形の核を有する腫瘍細胞が線維状に配列する部分と多数の whorl 形成がみられ，transitional type meningioma であった。また mitosis や necrosis は存在しなかった (Fig. 6A)。2回目手術時に internal jugular vein の内腔より得られた組織標本では，基本的には intracranial のものと同様で whorl 形成を伴う meningioma であった (Fig. 6B)。また internal jugular vein の wall の一部には

Fig. 5 Surgically removed, dilated internal jugular vein which is filled with the tumor. The left side is proximal and the right side is distal.

Fig. 6 Photomicrographs of the tumor. A: Surgical specimen obtained from the parietooccipital area. The tumor is composed of spindle shaped cells with round to oval nuclei, and of numerous whorl formations. Histological diagnosis is transitional type meningioma. HE stain, $\times 100$. B: Surgical specimen obtained from the internal jugular vein at the second operation. Whorl formation is observed. Slight pleomorphism of the nucleus is seen, but mitosis or necrosis is not present. HE stain, $\times 200$. C: Surgical specimen obtained from the internal jugular vein. Tumor invasion into the wall of the internal jugular vein is observed. HE stain, $\times 40$.

腫瘍細胞が間隙をぬうように浸潤、發育している像を確認したが、組織学的には悪性像は認めなかった(Fig. 6C)。

2回目手術後経過：神経学的には変化なく、術後6ヵ月の現在、CT スキャン上再発をみていない。しかし meningioma の再発については、古瀬ら²⁾によると手術時から初回再発まで最短1年2ヵ月、平均4年7ヵ月とされており、今後も follow up CT スキャンが必要であると考えられる。

III 考 察

本症例は組織学的には典型的な meningioma であったが、その病変の進展様式という点において特異なものである。本症例における結節の拡がりや静脈洞との関係を模式化して示すと(Fig. 7)のごとくであり、斜線の部分が tumor の認められた部位である。このような静脈洞に沿って internal jugular vein の中に腫瘤を形成するに至った特異な進展を適切に説明しうる概念は、これまでのものにはないものと考えられた。すなわち meningioma の特殊型としてはこれまでに multiple meningioma, meningiomatosis, meningeal meningiomatosis などが知られている。以下これらの概念と本症例を対比させてみたい。

初めに multiple meningioma については、Cushing と Eisenhardt²⁾ によって von Recklinghausen 氏病に合併していない“more than one meningioma but something less than a diffusion of them”と定義されている。本症例では

Fig. 7 Schematic representation of the relation between the tubercles and tumor extension in the sinuses.

CT スキャン上は rt. parietooccipital area, confluens, rt. lateral sinus に独立した結節があるようにみえたが、手術所見からは各結節間に明らかな連続性が認められたため、multiple meningioma とは考えにくかった。しかし難波ら¹²⁾の報告にみられるように、multiple meningioma が初めから multiple であったのか、原発巣からの転移により時間的経過を経て multiple になるのかは明らかにされていない。本症例の場合にも、parasagittal area に tumor が原発したのちに sinus 内へ invasion し、血流により中枢側の sinus へ転移し、増殖し原発部位との連続性を獲得するに至ったのか、あるいは初めから parasagittal area および tentorium area に別個に tumor が発生し、それらがそれぞれ sinus に沿って進展し、ついには連続性を獲得するに至ったのかを判断することは困難と思われた。一方 Levin ら¹⁰⁾は、multiple meningioma についてその multiplicity の原因は明らかではないとしながらも、“multicentric foci” “spread along cerebrospinal fluid pathway” “venous transmission” の3つの可能性があるとしている。他方、頭蓋内の meningioma が頭蓋外へ転移することはよく知られており、その頻度は0.1%と言われている^{1,8,16)}。転移の経路としては静脈系が重視されている^{8,10)}。しかし multiple meningioma における venous transmission の意義と頭蓋内 meningioma の頭蓋外転移における静脈系の果たす役割との関連については、諸家の報告の中に記載をみない。本症例においても、原発巣から venous transmission が起きて結果的に複数の結節を形成するに至ったのか (multiple meningioma)、あるいは原発巣から静脈系を介しての転移があり、internal jugular vein に至るまで複数の結節を形成するに至ったのかを区別することはきわめて困難である。い

ずれにしても本症例の病変の特異な拡がりの説明する上において、tumor cell の静脈系を介しての移動があったことは重要視されねばならない。この際、頭蓋内 meningioma が頭蓋外へ転移する場合の転移病巣別の頻度については、木野本ら⁸⁾によると lung, abdominal viscera, bone, lymph node の順に多く、Karasick ら⁷⁾によると lung, abdominal viscera, bone, mediastinum の順に多いとされている。本症例においては比較的転移しやすいとされている臓器への転移をきたすことなく、internal jugular vein 内に tumor がとどまって腫瘤を形成した点が特異である。その理由としては、原発巣より心臓側の sinus への tumor による invasion がその部の stenosis を招き、血流を減弱せしめ、血流のより緩慢な部位での tumor cell の定着、増殖を引き起こして internal jugular vein が閉塞したため、それより中枢側への tumor cell の移動をきたさなかったものと推定された。

次に meningiomatosis については、Rubinstein¹⁴⁾によれば von Recklinghausen 氏病に伴って多発性、瀰漫性に meningioma が認められる場合とされている。本症例の場合、von Recklinghausen 氏病の徴候もなくその家族歴もないこと、また結節の拡がり瀰漫性とは言えないことより、meningiomatosis とは考えにくかった。一方前述した multiple meningioma と meningiomatosis との関連については、両者を区別することを疑問視する見解もみられる^{8,15)}。

Meningeal meningiomatosis は、同じく Rubinstein¹⁴⁾によれば sarcoma の1型とされ、diffuse に leptomeninges を冒すとされている。またその組織像においては sarcoma の所見を示すとされている。本症例の場合には、組織学的にも

Table 1 Reported cases of meningioma appearing as a neck mass

Authors	Year	Age	Sex	Site	Originating site	Mode of extension	Pathological subtype
Laymon CW & Becker FT ⁹⁾	1949	72	M	lymph node	scalp	metastasis	malignant noncornifying epithelioma
Hoye SJ <i>et al.</i> ⁵⁾	1960	22	M	dural sheaths of the vagus or spinal accessory nerves	jugular foramen	direct extension	
Opsahl R Jr & Löken AC ¹³⁾	1965	70	M	lymph node	scalp	metastasis	meningothelial
Hallgrímsson J <i>et al.</i> ⁴⁾	1970	15	M	accessory nerve sheath	accessory nerve sheath	direct extension	psammomatous
Maniglia AJ & Page LK ¹¹⁾	1979	9	F	vagus and hypoglossal nerve	posterior fossa and temporal bone	direct extension	meningotheliomatous
Authors	1982	37	F	internal jugular vein	parasagittal	venous transmission	transitional

結節の拡がり方という点においても否定的と考えられた。

以上、いずれの meningioma の特殊な型についてみても本症例を適切に説明するものはないと考えられた。しかし tumor が parietooccipital area を除くとすべて sinus 系に集中し、それと連続する internal jugular vein 内に、頭蓋内に認められたものと同じ tumor cell を認めたことより、血流に乗った tumor cell の移動があったことは否定できないものと思われた。それを multiple meningioma と考えるか転移と考えるかは現段階では明らかにしえず、今後の検討に待たなくてはならない。

最後に meningioma が頸部に腫瘤を形成した例としては、我々の知りえた範囲内ではかつて5症例が報告されている (Table 1)。Laymon ら⁹⁾の例では scalp に原発し lymph node に転移したものである。Hoye ら⁵⁾の例では jugular foramen 部に原発した meningioma が direct に extension し、spinal accessory nerve sheath あるいは vagus nerve sheath に腫瘤を形成したものである。Opsahl ら¹³⁾の例では、scalp に原発し lymph node に転移したものである。Hallgrímsson ら⁴⁾の例では、accessory nerve sheath に原発している。Maniglia ら¹¹⁾の例では、posterior fossa と temporal bone の meningioma が direct に extension し、vagus nerve と hypoglossal nerve に mass を形成したものである。本症例のごとく internal jugular vein 内に腫瘤を形成した例はかつて報告をみない。

IV 結 語

Rt. parasagittal area より rt. parietooccipital area を中心に、superior sagittal sinus, confluens, lateral sinus, tentorium, sigmoid sinus, jugular bulb, internal jugular vein 内に腫瘤を形成したきわめて特異な meningioma の1症例を報告し、その病変の進展の mechanism につき若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は、第8回日本脳神経外科学会北海道地方会 (1982年3月、札幌)において発表した。

文 献

- 1) Bauman J: A contribution to the problem of extracranial metastasis in meningiomas. *Confin Neurol* 18: 394-397, 1958
- 2) Cushing H, Eisenhardt L: Meningiomas. Their classi-

fication, regional behavior, life history, and surgical end results. New York, Hafner, 1962, pp 115-132

- 3) 古瀬和寛, 小林達也, 梅村 訓, 桑山明夫, 杉田虔一郎, 永井 肇, 景山直樹: 髄膜腫の術後予後と再発についての検討. *脳神経外科* 5: 1239-1246, 1977
- 4) Hallgrímsson J, Björnsson A, Gudmundsson G: Meningioma of the neck. Case report. *J Neurosurg* 32: 695-699, 1970
- 5) Hoye SJ, Hoar CS, Murray JE: Extracranial meningioma presenting as a tumor of the neck. *Amer J Surg* 100: 486-489, 1960
- 6) 井奥匡彦, 黒田良太郎, 渡部 優, 田口 薫, 赤井文治: 多発性髄膜腫. *脳神経外科* 7: 637-644, 1979
- 7) Karasick JL, Mullan SF: A survey of metastatic meningiomas. *J Neurosurg* 40: 206-212, 1974
- 8) 木野本均, 岩崎喜信, 中川 翼, 伊藤輝史, 田代邦雄, 阿部 弘, 都留美都雄, 樋口政法, 金田清志: 髄膜腫の頭蓋外転移 — 2例報告と文献的考察 —. *脳神経外科* 10: 319-326, 1982
- 9) Laymon CW, Becker FT: Massive metastasizing meningioma involving the scalp. *Arch Dermatol Syph* 59: 626-635, 1949
- 10) Levin P, Gross SW, Malis LI, Kirshenbaum AH, Hollin SA: Multiple intracranial meningiomas. *Surg Gynec Obstet* 119: 1085-1090, 1964
- 11) Maniglia AJ, Page LK: Posterior cranial fossa and temporal bone meningioma in a child, appearing as a neck mass. *Otolaryngol Head Neck Surg* 87: 578-583, 1979
- 12) 難波真平, 石光 宏, 坪井雅弘: 多発性髄膜腫の1摘出治験例. *脳神経外科* 6: 571-575, 1978
- 13) Opsahl R Jr, Löken AC: Meningioma with metastases to cervical lymphnodes. Case report. *Acta Path Microbiol Scand* 64: 294-298, 1965
- 14) Rubinstein LJ: *Tumors of the Central Nervous System. Atlas of Tumor Pathology; Second Series Fascicle 6*. Washington, DC., Armed Forces Institute of Pathology. 1972, pp 200, 305-306
- 15) 和賀志郎, 松田昌之, 半田 肇, 松島正之, 安藤協三: 多発性髄膜腫 multiple meningiomas. *脳と神* 24: 393-402, 1972
- 16) Wasserkug R, Peyser E, Lichtig C: Extracranial bone metastases from intracranial meningiomas. *Surg Neurol* 12: 480-484, 1979

〔別刷請求先: 〒060 札幌市北区北15条西7丁目, 北海道大学脳神経外科, 今井知博〕