人工塞栓術直後に腫瘍出血をきたした髄膜腫の1例

渡辺 一良・松村 憲一・松田 昌之・半田 譲二

Meningioma with Intratumoral and Subdural Hemorrhage as an Immediate Complication of Therapeutic Embolization

Case Report

Kazuyoshi WATANABE, Ken-ichi MATSUMURA, Masayuki MATSUDA
and Jyoji HANDA

Department of Neurosurgery, Shiga University of Medical Science, Ohtsu

Abstract

A 63-year-old female with a large meningioma of the middle cranial fossa was admitted. The tumor was fed mainly by the hypertrophied middle meningeal artery. Immediately following a seemingly successful embolization of that artery with gelfoam powder, consciousness of the patient rapidly declined and anisocoria and decerebrate posturing developed. An intratumoral massive hemorrhage ruptured into and extended widely in the subdural space was confirmed by computed tomography scan. The hematoma was evacuated and the tumor was radically removed by emergency craniotomy, and the patient recovered.

Therapeutic embolization for meningiomas and other highly vascular intracranial tumors has been established as a useful and relatively safe adjunctive preoperative measure, and an intratumoral massive hemorrhage in the period immediately following this procedure has seldom been reported in the literature. However, the present case shows that it is apparently a potential complication of this procedure. The possible mechanisms of an intratumoral hemorrhage following therapeutic embolization of the feeding arteries are briefly discussed.

Key words: meningioma, intracranial hemorrhage, therapeutic embolization, gelfoam powder, surgical removal

I はじめに

頭蓋内腫瘍や血管奇形などに対して、手術時の出血量を軽減させる目的で、あるいは手術の治療が困難な場合の根治療法として、人工的塞栓術(therapeutic embolization)が用いられる。なかでも、髄膜腫は外頭動脈枝より栄養されることが多いため、しばしば人工塞栓術の良い適応となる。今回我々は、人工塞栓術を施行した直後に、腫瘍内および硬膜下出血が生じた髄膜腫の症例を経験した。これま

でも人工塞栓術の合併症として腫瘍内出血は報告されている^{5,10)}が、いずれも出血は比較的軽微であり、また本症例のごとく塞栓術直後に出血した例はきわめてまれであるため、若干の文献的考察を加えて報告する。

II 症 例

＜患者＞ 63才、女性

主訴：頭痛、記憶力減退

既往歴：1982年頃、嘔気を伴う左側頭部痛のため5日

滋賀医科大学脳神経外科

Address reprint requests to: K. Watanabe, M.D., Department of Neurosurgery, Shiga University of Medical Science, Seta-tsukinowa-cho, Ohtsu 520-21.

受稿 1985年7月12日 受理 1986年6月11日

間、さらにその3ヵ月後にも同様の症状で3日間療養したことがあるが、いずれも神経学的脱落症状なく治癒した。

現病歴：1984年8月頃より自発性欠如、意欲減退、発語の減少に気付き、1985年1月頃より記銘力障害および前傾小刻み歩行が出現した。同年4月、CTで異常を指摘されたため入院した。

入院時所見：頭痛、嘔気などはなく、神経学的には意識清明で、左側眼底に軽度のうっ血乳頭を認めるも視力は正常であった。左動眼神経不全麻痺を認めたが、錐体路徴候はなかった。その他、無表情、無気力、記銘力低下がありやや catatonic で、歩行時は前傾姿勢で小刻み歩行がみられた。血圧112/60 mmHg、血液生化学的検査および血液凝固能検査でも異常を認めなかった。

入院後経過：頭部CTにて、左蝶形骨縁から錐体前縁に及ぶ、中頭蓋窩全体を占め内部に石灰化を含む高吸収値の腫瘍を認め、中等度の正中偏位を伴っていた。腫瘍は、造影剤静注により均一に増強された(Fig. 1)。5月1日、Seldinger法によりNewton 7636カテーテルを用いて左内頸動脈、椎骨動脈、および外頸動脈撮影を行った。この間、血圧は120~140/80~90 mmHgで安定し、意識および神経学的所見に変化はみられなかった。外頸動脈撮影では主として中硬膜動脈を起源とするきわめて高度の腫瘍血管像を認め、静脈相末期まで均質な陰影として残存しており、髄膜腫に典型的な像を示していた(Fig. 2A)。そこで、引き続きカテーテル先端を左外頸動脈の分岐部より約5

Fig. 1 Enhanced computed tomography (CT) scan, showing a large middle fossa meningioma.

Fig. 2 Selective left external carotid angiograms. A: Before embolization. Note prominent tumor vessels. B: After embolization. The middle meningeal artery is occluded and the tumor stain is barely visible.

cm 末梢に置き、主要栄養血管である左中硬膜動脈が硬膜を穿通する部分から約2 mm 末梢で描出されず腫瘍陰影も認められなくなるまで、造影剤に混じた gelfoam powder を数回に分けて透視下で観察しながら注入した(Fig. 2B)。この直後に、患者は嘔吐をきたすとともに昏迷状態となった。ただちにカテーテルを抜去し、穿刺部を圧迫しているうちに意識状態はさらに悪化し、右片麻痺が出現した。即効型ステロイド剤を静注の上CT室に搬入した際の血圧は170/100 mmHg、呼吸は不整で浅表性であった。人工塞栓術後のCTで腫瘍内出血と硬膜下血腫、さらに占拠性効果の増強を認めた(Fig. 3)。手術開始直前(人工塞栓後症状悪化を認めてから約1時間後)には半昏睡となり、左瞳孔は散大、対光反射は遅延し、痛刺激で右除脳姿勢を呈した。

手術所見：左前頭側頭開頭を行うと、硬膜内圧は著明に亢進し、術野全域に硬膜下血腫が透見された。側頭骨鱗部と蝶形骨縁を削除する際、中頭蓋窩先端で暗赤色の腫瘍が硬膜および骨を穿通して pterygoid fossa に進展しているのが認められた。硬膜を切開し厚さ約5 mmの硬膜下血腫を除去すると、脳実質外腫瘍が前頭葉・側頭葉を挙上して中頭蓋窩を満たし、一部蝶形骨縁を越えて前頭蓋窩に達するのが認められた。腫瘍は暗赤色で弾性軟、血管に富み易出血性で、表面から約5 mmの深さに腫瘍内出血がみられ、これが穿破して硬膜下血腫に連なるのが認められた。CU-SAで被膜内の腫瘍を除去し減圧すると、被膜と前・側頭葉、左内頸・中脳・後交通各動脈、左第Ⅱ・Ⅲ脳神経との剥離は容易で、pterygoid fossa への進展を含め腫瘍を全剔出した。硬膜への付着部は明らかでなかったが、少なくとも蝶形骨縁ではなく、おそらく pterygoid fossa へ進展していた中頭蓋窩先端の大翼中央部付近と思われた。

Fig 3 CT scan obtained immediately after embolization. The tumor is enhanced by contrast medium used at the preceding angiography. Lower window level and higher window width settings are used to show the hemorrhage to better advantage (arrows)

組織学的には、大型細胞の whorl formation と bipolar cell stream を認め、多型性は低く、transitional meningioma と診断された (Fig. 4)。

術後経過：術後間もなく意識障害および右片麻痺は改善したが、左眼失明が明らかとなった。これは、眼底検査により左網膜中心動脈の白色構造物による閉塞と網膜虚血の像が認められたことから、中心動脈閉塞によるものと判明し、人工塞栓の合併症と考えられた。術後の CT では腫瘍は全剔出されており、頭蓋形成術を施行したのち左眼失明を残して退院した。

III 考 察

頭蓋内疾患に対する人工塞栓術は、脳動静脈奇形や悪性腫瘍などにおいて手術に代わる方法として行われることがある^{2,3,12-15)}が、髄膜腫などの血管に富み手術時大量出血が予想される腫瘍に対しては、手術を前提とし術中出血の減少を目的として施行されることが多い^{5,10,17)}。Kepes⁶⁾、Modesti ら⁷⁾が指摘しているように、髄膜腫は頭蓋内血管性病変とよく似た症状を呈して発症することも多く^{3,4,8-11,13,15)}、また多型性膠芽腫、下垂体腺腫、転移性腫瘍ほどではない^{16,18)}にしても、自然経過として出血することも稀有とは言えない。さらに尾藤ら¹⁾は、髄膜腫は脳内・硬膜下・クモ膜下出血など頭蓋内出血の各型を合併しうるばかりでなく、静脈洞や大血管を巻き込み、またはこれらを圧排して頭蓋内圧亢進症状や脳虚血性変化を引き起こし、急性発症ないし増悪しうると報告している。しかし本症例では、その時間的關係からこの腫瘍出血が偶発性のものであると考えるのは困難であり、人工塞栓術により引き起こされたものとする。

Fig. 4 Photomicrographs of the surgical specimen. HE stain, $\times 40$. A. Sheets of whorls of polygonal large cells and streams of bipolar cells are seen. Transitional meningioma. B. Intraparenchymal hemorrhage surrounding the arterioles of normal appearance

人工塞栓術の合併症としては、直後に生ずるものとして前頭部・下顎部・側頭部などの疼痛、内頸動脈に塞栓物質が流入することによる脳梗塞などが、また数日を経た後から明らかになるものとして皮膚創傷の癒合不全、頭蓋内出血、肺塞栓などがしばしば報告されている^{3,5,8,10,12,13,15)}。また、腫瘍に対する人工塞栓術ののちに、腫瘍の虚血や壊死により占拠性効果の増強をきたすことがあることもよく知られているが、本症例のごとく人工塞栓術直後に頭蓋内出血が生じ急速に悪化した報告は脳動静脈奇形で数例^{3,8)}を認めるにすぎず、それ以外に頭蓋内腫瘍例ではほとんど報告がない。人工塞栓術後に腫瘍内出血の生ずる機序としては、①いったん閉塞した栄養血管の再開通による出血性梗塞の場合、②複数の栄養血管を有する病変でそのいずれかが閉塞されずに残存し、これにかかる静水圧(血圧)が上昇して動脈側で血管の破綻をきたす場合、③塞栓物質が栄養動脈を通り過ぎて静脈部分を閉塞したため出血する場合、④腫瘍内の出血しやすい component すなわち angioma, aneurysm, 不完全な血管壁を有する新生血管な

どから出血する場合、が挙げられる。このうち①の出血性梗塞は、栄養動脈閉塞により腫瘍および腫瘍内血管が壊死に陥るだけの時間が必要であり、少なくとも症状発現までに数時間を要するとされる。本症例のごとく、塞栓術後数分間で意識レベルの低下、あるいは嘔吐などの頭蓋内出血に伴う症状を呈した場合には、②～④のいずれかまたはその組み合わせが考えやすい。本症例では出血部分の病理標本で、細動脈を中心としこれを取り巻くように瀰漫性の出血所見が認められたが、多数の標本でも梗塞所見は認められなかった。本症例の場合、腫瘍は外頸動脈起源の中硬膜動脈のほかにも内頸動脈から眼動脈および涙腺動脈、また meningohipophyseal trunk より天幕動脈の分枝、さらに中大脳動脈の分枝などにより栄養されており、このうち主たる中硬膜動脈が閉塞しても他のルートによる血流は保たれる。また、使用した gelfoam powder は粉末状で細かいため、これが静脈性部分を一次的に閉塞し、少なくとも内頸動脈からの動脈血流入はあまり減少しないため、腫瘍血管の内圧が亢進して破綻し出血したことが考えられる。いずれにしても、本症例は、良性腫瘍に対する人工塞栓術の場合でも頭蓋内出血の可能性を常に念頭に置き、緊急手術で対処できるよう準備を整えた上で行うべきであることを示唆している。また、腫瘍摘出術は一般に人工塞栓術後できるだけ早期に計画すべきであると思われる^{5,10)}。なお、本症例でみられた患側の網膜中心動脈閉塞症は、①塞栓物質が内頸動脈へと逆流して眼動脈を閉塞した、②腫瘍内出血により内頸動脈が急激に挙上伸展し、眼動脈起始部に狭窄ないしねじれが生じた、③外頸動脈—頸動脈—涙腺動脈—眼動脈のルートを経て gelfoam により眼動脈が閉塞された、などの理由が考えられる。そのいずれが正しいかは決定しがたいが、人工塞栓術後の選択的外頸動脈撮影で③のルートを経て内頸動脈が描出されていることから、最後の推論も否定しえない。

Ⅳ 結 語

人工塞栓術直後に腫瘍内出血をきたし、緊急手術により救命した1例を報告し、出血の機序について考察を加えた。髄膜腫などの比較的腫瘍内出血がまれである腫瘍に対して人工塞栓術を施行する場合でも、頭蓋内出血などの緊急事態に対処できるよう心がけるべきであることを強調した。

文 献

- 1) 尾藤昭二, 榎 三郎: 中大脳動脈閉塞によって急速に症状の発現をみた中頭蓋窩髄膜腫の一例。脳と神 23: 953-957,

- 1971
- 2) Budny JL, Glasauer FE, Sil R: Rapid recurrence of meningioma causing intracerebral hemorrhage. *Surg Neurol* 8: 323-325, 1977
- 3) Debrun G, Vinuera F, Fox A, Drake CG: Embolization of cerebral arteriovenous malformations with bucrylate. *J Neurosurg* 56: 615-627, 1982
- 4) Glass B, Abbot KH: Subarachnoid haemorrhage consequent to intracranial tumors. *Arch Neurol Psychiat* 73: 369-379, 1955
- 5) 伊藤寿介, 横山元晴, 今村 均, 吉田誠一, 鷺山和雄: 外頸動脈領域における embolization の経験。脳神経外科 8: 1145-1153, 1980
- 6) Kepes JJ: *Meningiomas: Biology, Pathology and Differential Diagnosis*. New York, Masson, 1982, pp 32-33
- 7) Modesti LM, Binet EF, Collins GH: Meningiomas causing spontaneous intracranial hematomas. *J Neurosurg* 45: 437-441, 1976
- 8) Pevsner PH, Doppman JL: Therapeutic embolization with a microballoon catheter system. *Amer J Roentgen* 134: 949-958, 1980
- 9) Rosenberg GA, Herz DA, Leeds N, Strully K: Meckel's cave meningiomas with subarachnoid hemorrhage. *Surg Neurol* 3: 333-336, 1975
- 10) 志賀逸夫, 柳下 章, 大内敏宏, 岩田隆信, 戸谷重雄: 頭蓋内髄膜腫への応用 —人工塞栓術の臨床応用—. 臨放線 26: 7-13, 1981
- 11) Smith VR, Stein PS, MacCarty CS: Subarachnoid hemorrhage due to lateral ventricular meningiomas. *Surg Neurol* 4: 241-243, 1975
- 12) Suzuki J, Komatsu S: New embolization method using estrogen for dural arteriovenous malformation and meningioma. *Surg Neurol* 16: 438-442, 1981
- 13) Wallace S, Charnsangavej C, Carrasco H, Bechtel W: Infusion-embolization. *Cancer* 54: 2751-2765, 1984
- 14) Walsh JW, Winston KR, Smith T: Meningioma with subdural hematoma. *Surg Neurol* 8: 293-295, 1977
- 15) Whittle IR, Johnston IH, Besser M, Lamond TS, Silva M: Experience with bucrylate (isobutyl-2-cyanoacrylate) embolization of cerebral arteriovenous malformations during surgery. *Surg Neurol* 19: 442-449, 1983
- 16) Yasargil MG, So SC: Cerebellopontine angle meningioma presenting as subarachnoid haemorrhage. *Surg Neurol* 6: 3-6, 1976
- 17) 吉田一成, 戸谷重雄, 高宮至昭, 村上秀樹, 河瀬 斌, 志賀逸夫: 頭蓋内髄膜腫に対する術前栄養血管塞栓術。Neurol Med Chir (Tokyo) 25: 471-478, 1985
- 18) Zimmerman RA, Bilaniuk LT: Computed tomography of acute intratumoral hemorrhage. *Radiology* 135: 355-359, 1980

〔別刷請求先: 〒520-21 大津市瀬田月輪町, 滋賀医科大学脳神経外科, 渡辺一良〕