巨大な中頭蓋窩海綿状血管腫の1治験例

古場 群己・永井 恭介・岡田 和紀・三輪 哲郎

Large Extracerebral Cavernous Angioma in the Middle Cranial Fossa

Case Report

Tomomi Koba, Kyosuke Nagai, Kazuyuki Okada and Tetsuro Miwa

Department of Neurosurgery, Tokyo Medical College, Tokyo

Abstract

There have been only a few reports on cases of extracerebral cavernous angioma in the middle cranial fossa. The patient was a 45-year-old male with the chief complaints of hypoactivity and memory disturbance. On admission, memory disturbance and bilateral papilledema were confirmed neurologically. Plain craniograms revealed erosion of the left petrous bone. Computed tomography showed a high-density area in the whole left middle cranial fossa, which was slightly enhanced. Carotid angiography, however, indicated an avascular mass. Microsurgical total extirpation by a two-stage operation was successful in this case. The first operation was subtotal removal including excision of the tumor by loop electro-cautery followed by bleeding control with a bipolar coagulator. Total removal was performed in the second operation. The patient had mild postoperative disorders of the trigeminal and abducent nerves.

Total extirpation is difficult under these conditions because the operation is apt to cause bleeding and because the tumor contains the large artery and the cranial nerves. Therefore, the prognosis for this condition is poor despite measures such as the combined use of radiation.

Key words: middle cranial fossa, extracerebral cavernous angioma

I はじめに

血管奇形の一型とされる海綿状血管腫が中頭蓋窩に発生した場合、腫瘍様の占拠性病変として発育する例があり、その報告も散見される¹⁻²²⁾。しかし、その頻度は低く、手術摘出例はきわめて少なく、その予後も不良である。今回我々は、巨大な腫瘍性発育を示した中頭蓋窩の脳実質外海綿状血管腫に対して two-stage operation を施行、全摘出に成功し良好な予後を得た1例を経験したのでここに報告し、併せて文献的考察を行う。

II 症 例

＜患者＞ 45才、男性

主訴：活発性の低下、記憶力障害

家族歴および既往歴：特記すべきことなし

現病歴：1982年頃より物忘れが日立ち、またときどき強い眠気に襲れることがあった。1983年5月に居眠り運転により交通事故を起こし、かつ活発性の低下や記憶力障害がみられていたため、本院精神科を受診して当科を紹介され、8月8日入院となった。

入院時神経学的所見：精神症状として活発性の低下、記憶力障害がみられ、その反面易怒性が日立った。その他、

東京医科大学脳神経外科

Address reprint requests to: T. Koba, M.D., Department of Neurosurgery, Shikaihoken Central General Hospital, 2-12-1 Okubo, Shinjuku-ku, Tokyo 160.

受稿 1985年6月27日 受理 1986年6月23日

知覚・運動系正常，表在・深部反射正常，病的反射はなかった。脳神経系では，左三叉神経Ⅱ・Ⅲ枝領域に知覚低下が疑われる以外に異常所見は認められず，腰椎穿刺では初圧230 mmH₂O，髄液は水様透明で内容に異常所見を認めなかった。

神経放射線学的検査所見：頭部単純撮影では左錐体骨に破壊像がみられたが，石灰化像は認められなかった(Fig. 1)。Plain CTにて，左中頭蓋窩全域を占める境界鮮明な6.0×7.5×7.0 cm大の著明な高吸収域を認め，脳室系は圧排・変形し，正中構造は対側へ偏位していた。しかし，周囲に低吸収域は認められず，造影剤注入によりいくぶん増

Fig. 1 Skull X-rays, axial and Towne's view. An erosion of the left petrous bone is shown (arrow).

Fig. 2 Plain computed tomography (CT) scan showing a high-density area in the left middle cranial fossa.

Fig. 3 Left carotid angiograms. The middle cerebral artery is displaced upward and the anterior cerebral artery is displaced contralaterally. There is a large avascular area in the middle cranial fossa.

強された(Fig. 2)。^{99m}TcによるRI-brain scanでは，左側頭部に著明なRIの集積像(hot scan)を認めた。さらに，左頸動脈撮影動脈相において，中大脳動脈は起始部より上内側へ，また前大脳動脈は右方に偏位し，側頭部に大きな無血管野が存在していた。なお，腫瘍陰影は認められなかった(Fig. 3)。以上の所見より，左中頭蓋窩の海綿状血管腫あるいは髄膜腫を疑い，1983年9月5日，左前頭側頭開頭を行った。

第1回手術所見：腫瘍は暗赤色で薄い被膜を有し，中頭蓋窩硬膜外より発生し側頭葉を挙上していた。摘出に際し，腫瘍は易出血性で底部の硬膜より剥離困難であったため，loop tip電気メスにて硬膜ごとpiece mealに大部分を切除した。しかし，腫瘍断面よりの出血が強く，CO₂レーザー・メスを使用したものの止血効果はなく，結局bipolar coagulatorにより丹念に断面を凝固止血し，内頸動脈を巻き込んだ内側部を残して亜全摘とした。術中の出血量は3,500 mlで，文字通り海綿より湧くような出血であった。

病理組織学的所見：一層の内皮細胞に覆われ，著明に拡張増生した血管群より成る海綿状血管腫であった(Fig. 4)。

術後経過：術後，38.0℃前後の高熱が持続し，腰椎穿刺により茶褐色の髄液が採取されたが，培養において細菌は証明されなかった。意識状態はほぼ清明で項部硬直も軽く，この無菌性髄膜炎様症状は2週間持続した。その後，術後に認められた顔面の知覚障害に加えて，新たに左外転神経・顔面神経(第Ⅵ・Ⅶ脳神経)麻痺を生じたが，いずれも軽度で漸次改善傾向を示した。また，精神症状も著明に改善し，活発性も向上して笑顔が多くなり，礼儀正しくなった。記銘力障害も著しく改善した。術後20日目のCT像

Fig. 4 Microscopic section of the surgical specimen. The histological diagnosis was cavernous angioma. HE stain, $\times 100$.

では、左傍トルコ鞍部に残存腫瘍がみられたが、脳室の圧排・変形や正中構造の偏位は消失していた (Fig. 5)。

第2回手術所見：第1回手術より7ヵ月後に第2回目の手術を施行した。海綿静脈洞および内頸動脈を十分観察する目的で、前回より前頭部へやや開頭範囲を広げた。前回の手術で摘出した部分は、CTで予想されたごとく cyst を形成しており、髄液の貯留を認めた。腫瘍は前回より出血が少なく、顕微鏡下に全摘出しえた。血管腫の発生部は中頭蓋窩底部と思われ、腫瘍を全摘出すると硬膜の欠損が認

Fig. 5 Postoperative contrast enhancement CT scan (CE-CT) revealing a residual angioma in the left middle cranial fossa.

められた。

第2回手術後CT検査所見：血管腫が存在していた部分は広い低吸収域となり、髄液の貯留が示唆されたが、血管腫はまったく認められなかった (Fig. 6)。術後、左顔面知覚障害と軽度の下顎偏位、ならびに左外転神経麻痺を残したが、1984年10月現在、社会復帰している。

III 考 察

中頭蓋窩に占拠性に発育する海綿状血管腫はまれであり、手術治療例も少なく、我々の渉猟しえた限りでは自験例を加え31例⁽¹⁻²²⁾にすぎない (Table 1)。これらの症例において、以下3点につき検討を加える。

1. 臨床症状

全症例の平均年齢は41.5才で、女性に多い。出血で発症したと思われるものは耳出血および耳痛で発症した Case 2 の1例にすぎず、その他はほとんど圧迫症状にて発症している。すなわち、視力障害を呈したものが16例、動眼神経麻痺も16例と多い。さらに、三叉神経障害7例、外転神経麻痺3例、顔面神経麻痺3例と続き、眼球突出が8例、視野障害も7例に認められる。その他、錐体路症状である片麻痺が3例、精神症状3例、痙攣発作1例である。また、4例が妊娠中に発症しており、その原因は不明であるが、特にホルモンとの関係で注目し値する。神経症状出現の機序としては、解剖学的に予想される通り、中頭蓋窩を走行する脳神経が硬膜外で障害される場合、また正中方向に腫瘍が伸展し動眼神経や視神経を圧迫・損傷する場合が考えられる。視野障害は視神経の直接圧迫症状が多く、眼球突出は腫瘍が海綿静脈洞を閉塞した結果と想像される。自験例は、側頭葉症状を思わせる記憶・記銘力障害、眠気発作、怒りっぽい (爆発性、乱暴) などの症状が主体であり、脳神経症状としては軽度の三叉神経障害を認めた。

Fig. 6 CE-CT scan after the second operation. The angioma in the left middle cranial fossa has disappeared.

Table 1 Reported cases of cavernous angioma in the middle fossa (continuing to next page)

Case No.	Author (Year)	Age/Sex	Side	Symptoms & signs	Treatment	Outcome
1	Watanabe (1943) ²¹⁾	41/F	lt.	lt. disturbance of visual acuity, CN III palsy	partial removal	operative death
2	Kessler <i>et al.</i> (1957) ¹¹⁾	8/F	rt.	lt. hemiparesis, rt. otalgia, rt. otorrhagia	decompression	operative death
3	Pásztor <i>et al.</i> (1964) ¹⁶⁾	36/F	rt.	disturbance of visual acuity, lt. homonymous hemianopsia, rt. CN III palsy	total removal	poor
4	Kawaguchi <i>et al.</i> (1965) ¹⁰⁾	41/F	lt.	disturbance of visual acuity, lt. CN III·V·VI·VII palsies, lt. exophthalmos, mental dullness	subtotal removal	poor
5	Kamrin <i>et al.</i> (1965) ⁹⁾	46/F	rt.	rt. CN III palsy, lt. hemianopsia	partial removal	operative death
6	Ishijima <i>et al.</i> (1966) ⁷⁾	31/F	lt.	disturbance of visual acuity, exophthalmos, rt. hemianopsia	partial removal	poor
7	Finkemeyer <i>et al.</i> (1968) ¹⁾	25/F	lt.	lt. exophthalmos, lt. CN III·V palsies (pregnancy)	partial removal	poor
8	"	28/F	rt.	rt. CN III·V·VI palsies, rt. otalgia (pregnancy)	partial removal	poor
9	"	22/F	rt.	headache, choked disk (pregnancy)	partial removal	good
10	Ito <i>et al.</i> (1977) ⁸⁾	49/F	rt.	disturbance of visual acuity, rt. CN III·VI·VII palsies	subtotal removal	death
11	Fukui <i>et al.</i> (1978) ²⁾	42/F	rt.	disturbance of visual acuity, rt. CN III·V·VII palsies	partial removal	fair
12	"	62/F	lt.	lt. CN III palsy	partial removal	poor
13	"	45/F	lt.	disturbance of visual acuity, dullness, mental dullness	partial removal	poor
14	Sanoiarido <i>et al.</i> (1978) ¹⁸⁾	58/M	rt.	rt. CN II palsy, rt. exophthalmos	subtotal removal	unknown
15	Ono <i>et al.</i> (1979) ¹⁴⁾	44/M	?	quadrantanopsia	electrically induced thrombosis	good

2. 神経放射線学的所見の特徴

頭蓋単純撮影では、蝶形骨小翼の破壊像が6例、トルコ鞍部の変化12例(前床突起破壊4例、後床突起破壊4例、ballooning 2例、double floor 2例)、上眼窩裂の拡大3例、錐体骨の破壊像が2例にみられる。骨の破壊像が主体であり、石灰化像やhyperostosisは各1例報告されているのみである。この点は、骨変化を伴う他の腫瘍との鑑別の上で重要であろう。

CTは31例中10例で施行されており、単純CTにて7例(70%)が高吸収域、2例(20%)が等吸収域、1例(10%)が低吸収域を呈し、造影剤注入後のCTで著明に増強されるものが7例(70%)、軽度増強が3例(30%)であり、高吸収域を示すものが多い。

伊藤ら⁸⁾は脳血管撮影所見を、I型：無血管野で血管の偏位のみ示すもの、II型：腫瘍陰影のみ示すもの、III型：腫瘍陰影と栄養血管のみみられるもの、と分類している。こ

れに血管写の記載のある25例をあてはめてみるとI型10例(40%)、II型8例(32%)、III型7例(28%)となる。栄養血管としては、中硬膜動脈4例、meningohypophyseal trunk 3例、inferior cavernous artery 2例が報告されている。しかし、いずれも動静脈奇形の特徴的所見を示しておらず、mass signのみの所見が多い。また、血管写上も髄膜腫との鑑別が重要となるが、本症では外頸枝の介入が少ない点の特徴であろう。

3. 治療上の問題点と予後

手術は、全摘7例(23%)、亜全摘6例(19%)、部分摘出16例(52%)、その他2例(6%)であり、部分摘出に終わったものが大半を占めている。その理由としては、摘出時に腫瘍からの出血がcontrol不能となり、手術が中断されたものが多いためである。4例に放射線照射が行われており、Case 21, 23, 26では2,850~5,000 radの⁶⁰Co照射が併用されているが、柴田ら¹⁹⁾は3,000 radの術前照射を行った時

Table 1 Reported cases of cavernous angioma in the middle fossa (continued)

Case No.	Author (Year)	Age/ Sex	Side	Symptoms & signs	Treatment	Outcome
16	Manz <i>et al.</i> (1979) ¹²⁾	30/M	lt.	headache, vomiting, disturbance of visual acuity, hemianopsia	total removal	poor
17	Ichikizaki <i>et al.</i> (1980) ⁶⁾	49/F	rt.	disturbance of visual acuity, double vision	partial removal	operative death
18	"	46/F	rt.	rt. CN III palsy	partial removal	operative death
19	Gi <i>et al.</i> (1981) ³⁾	34/F	lt.	disturbance of visual acuity, hemianopsia, exophthalmos	partial removal	poor
20	"	29/F	lt.	lt. exophthalmos, disturbance of consciousness, CN I-III palsies (pregnancy)	subtotal removal	operative death
21	"	50/F	lt.	lt. exophthalmos, lt. CN II-III-V palsies	partial removal + ⁶⁰ Co 5,000 rads	fair
22	Waga (1981) ²⁰⁾	53/F	lt.	lt. CN III-V palsies	partial removal	unknown
23	Shibata <i>et al.</i> (1981) ¹⁹⁾	44/F	rt.	disturbance of visual acuity, lt. hemiparesis	⁶⁰ Co 5,000 rads + total removal	death
24	Hirata <i>et al.</i> (1982) ⁵⁾	44/F	lt.	disturbance of visual acuity	subtotal removal	poor
25	Harper <i>et al.</i> (1982) ⁴⁾	56/F	lt.	disturbance of visual acuity	total removal	poor
26	Yokoyama <i>et al.</i> (1982) ²²⁾	52/F	lt.	general convulsions	⁶⁰ Co 2,850 rads + subtotal removal	unknown
27	Sakamoto <i>et al.</i> (1982) ¹⁷⁾	53/F	lt.	exophthalmos (lt. > rt.), rt. upper quadrantanopsia, aphasia, lt. CN III palsy	total removal	poor
28	Namba (1983) ¹³⁾	30/F	rt.	headache, vomiting, disturbance of consciousness, disturbance of visual acuity, rt. CN III palsy, lt. hemiparesis	partial removal	death
29	Onoue <i>et al.</i> (1983) ¹⁵⁾	51/M	rt.	disturbance of visual acuity	total removal	unknown
30	"	44/F	?	disturbance of visual acuity, CN III palsy	partial removal + irradiation	unknown
31	Present case	45/M	lt.	mental dullness, memory disturbance, lt. CN V palsy	total removal (two-stage operation)	excellent

CN indicates cranial nerve.

点で腫瘍の著しい縮小がみられたとしており、術前照射の有用性を強調している。

予後については、摘出術のみが行われた25例において、神経症状が改善したものは3例のみであり、死亡7例(28%)、神経症状の悪化12例(48%)、不明3例であり、きわめて不良である。また、放射線照射を併用した4例でもけって良好とはいえない。手術による全摘が困難であり予後が不良である理由として、①易出血性で止血困難であること、②大血管を巻き込み、あるいは海綿静脈洞と関連していること、③硬膜外に発育し脳神経を巻き込んでいること、の3点が考えられる。これに対して、放射線照射の併用、YAG および CO₂ レーザーの使用、栄養血管の栓塞、総頸動脈の一時的結紮、電気凝固などの工夫がなされ

ているが、いずれも決定的な方法ではない。自験例では前述のごとく two-stage operation を行ったが、初回手術時には主として血管腫の切除断面よりの出血が著しく出血量が多くなったこと、内側部が内頸・中大脳動脈を巻き込んでいるためこの部を除去するには開頭範囲が狭かったことによるが、第2回目手術時は出血も少なく顕微鏡下に全摘しえた。第2回目に出血が少なかったことは、第1回目手術により血管腫内部や周囲からの血流動態が変化したためと予想される。しかし、第1回目手術後に無菌性髄膜炎様症状が持続し、これは髄液が茶褐色であったことから残存腫瘍および摘出床からの多少とも持続する oozing が原因であろうと考えられているが、本疾患の手術の際には念頭に置くべきことであろう。

IV 結 語

巨大な腫瘍性発育を示した中頭蓋窩脳実質外海綿状血管腫に two-stage operation を行い、全摘出に成功した。患者は、軽度の顔面知覚障害、下顎偏位、および外転神経麻痺を残したが、現在社会復帰している。

本疾患において全摘出が困難な理由は、主として易出血性でかつ止血が困難なことにあるが、文献的検討によりその対策を挙げ、さらに予後についても考察した。

本論文の要旨は、第12回日本脳神経外科学会関東地方会(1983年12月、東京)において発表した。

文 献

- 1) Finkemeyer VH, Kuntzky R: Das Kavernom des Sinus cavernosus. *Zbl Neurochir* 29: 23-30, 1968
- 2) 福井仁士, 沼口雄治, 沢田浩次, 河井宏一, 岸川 高, 倉本進賢, 北村勝俊: 中枢神経系の海綿状血管腫—診断と治療について—. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 18 [Part II]: 863-871, 1978
- 3) 魏 秀復, 森 惟明, 半田 肇: 頭蓋内海綿状血管腫の9例. *脳神経外科* 9: 267-276, 1981
- 4) Harper DG, Back DR, Early CB: Visual loss from cavernous hemangioma of the middle cranial fossa. *Arch Neurol* 39: 252-254, 1982
- 5) 平田好文, 松角康彦, 福村昭信: 急激な視力障害にて発症した海綿状血管腫の1例. *脳神経外科* 10: 201-206, 1982
- 6) 市来崎潔, 塩原隆造, 志澤寿郎, 飯坂陽一, 戸谷重雄, 大内敏宏, 鈴木島吉, 志賀逸夫, 大谷光弘, 二神 柏, 泉 周雄: Cavernous hemangiomaの診断におけるCTスキャンの有用性について. *CT研究* 2: 319-327, 1980
- 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, 矢嶋浩三, 植木幸明: 脳血管撮影上 feeding artery と腫瘍濃染像のみられた中頭蓋窩の海綿状血管腫. *臨放線* 22: 339-344, 1977
- 9) Kamrin RB, Buchstaum HW: Large vascular malformations of the brain not visualized by serial angiography. *Arch Neurol* 13: 413-420, 1965
- 10) 川口 進, 大沢武志: 頭蓋底から発生した海綿状血管腫の1例. *臨神経* 5: 705-708, 1965
- 11) Kessler LA, Lubie LG, Koskoff YD: Epidural hemorrhage secondary to cavernous hemangioma of the petrous portion of the temporal bone. *J Neurosurg* 14: 329-331, 1957
- 12) Manz HJ, Klein LH, Fermaglich J, Kattah J, Luessenhop AJ: Cavernous hemangioma of optic chiasm, optic nerves and right optic tract. *Virchows Arch [Path Anat]* 383: 225-231, 1979
- 13) Namba S: Extracerebral cavernous hemangioma of the middle cranial fossa. *Surg Neurol* 19: 378-388, 1983
- 14) 小野道夫, 黒沢範夫, 前田隆寛, 相羽 正, 原 満: Electrically induced thrombosisにより治療した下垂体部, 中頭蓋窩部海綿状血管腫の1例. *臨神経* 19: 326, 1979
- 15) 尾上尚志, 馬日佳信, 加藤康雄, 関野宏明, 中村紀夫: 中頭蓋窩硬膜外海綿状血管腫の2治験例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 23 [Suppl II]: 90, 1983
- 16) Pásztor É, 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
- 17) 坂本和也, 貫井英明, 和山裕千代, 佐々木秀夫, 大江千広: Laser surgeryによりほぼ全摘しえた中頭蓋窩海綿状血管腫の1例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 22 [Suppl II]: 64, 1982
- 18) Sanoiarido M, Passerini A: CT, angiography, and RI scans in intracranial cavernous hemangiomas. *Neuroradiology* 16: 256-260, 1978
- 19) 柴田尚武, 栗原正紀, 森 和夫, 天本祐平: 中頭蓋窩海綿状血管腫に対する術前照射とCT. *脳神経外科* 9: 211-215, 1981
- 20) 和賀志郎: 中枢神経系の海綿状血管腫(cavernous angiomas). *脳神経外科* 9: 881-895, 1981
- 21) 渡辺三喜男: 上耳古鞍外海綿状血管腫の1例. *日外宝* 20: 473-477, 1943
- 22) 横山博明, 辻村雅樹, 嶋田正彦, 森 和夫, 森 宣: 海綿状血管腫に対する術前の放射線療法. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 22 [Suppl II]: 220-221, 1982

[別刷請求先: 〒160 東京都新宿区大久保2-12-1, 社会保険中央総合病院脳神経外科, 古場群己]