頭蓋骨内髄膜腫の1例

栗原 英治・野垣 秀和・庄瀬 祥晃

Intraosseous Meningioma

Case Report

Eiji KURIHARA, Hidekazu NOGAKI and Yoshiteru SHOSE

Department of Neurosurgery, Toyooka Public Hospital, Toyooka, Hyogo

Abstract

An 82-year-old female was admitted with slowly progressive aphasia and right hemiparesis, accompanied by a hard, 5×5 cm subcutaneous swelling in the left frontotemporal region. Plain X-ray film showed a well-circumscribed round radiolucency in the left pterional region. Computed tomography (CT) scans showed an intraosseous mass lesion, homogeneously enhanced postcontrast, extending to the intracranial cavity. Bone CT demonstrated a concave appearance and partial destruction of the inner table, strongly suggesting an intradiploic origin of the tumor. Left carotid angiography revealed the mass supplied by the middle meningeal artery. Left frontotemporal craniectomy demonstrated that the inner surface of the skull was destroyed, and the dura was compressed but not invaded. Histological examination found meningotheliomatous meningioma with many psammoma bodies.

Key words: intraosseous meningioma, osteolysis, bone computed tomography

I はじめに

頭蓋骨内髄膜腫はその発生部位あるいは主な増殖部位が頭蓋骨内であるものを言うが、文献上記載のはっきりしているのは20例のみ^{1,2,5,6,9,11-15,17,18,21-23}できわめて珍しい。最近我々は、頭蓋骨板間内に発生し、さらに内板を破壊して頭蓋内に進展したと考えられた頭蓋骨内髄膜腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

II 症 例

＜患者＞ 82才、女性

主訴：右片麻痺、失語

家族歴・既往歴：特記すべきことなし

現病歴：2～3年前より時々言動におかしな点があった。1987年6月4日、転倒し、前頭部を打撲した。6月末頃より右上下肢脱力および失語が出現し徐々に悪化するため、

近医より当科へ転院した。

入院時所見：左前頭側頭部の皮下に約5×5cmの半球状の腫瘍があり、充実性で硬く、頭皮、頭蓋との可動性はなかった。神経学的検査では運動性失語、右半身不全麻痺を認めた。深部腱反射は右側が亢進していたが、Babinskiなどの病的反射は存在しなかった。脳神経には特に異常所見を認めなかった。

神経放射線学的検査所見：頭部単純写真では左冠状縫合を中心に pterion まで広がる約5×5cmの骨透亮像を認め、その辺縁は比較的鮮明であった(Fig. 1)。CTでは左頭蓋骨板間内から頭蓋内へ進展し、造影剤にて均一に造影される腫瘍像を認め、冠状断で頭蓋内の腫瘍が脳表を圧迫している所見が得られた(Fig. 2)。骨の濃度に合せたCTでは、骨の外板は保たれているが、内板は内側に向かって凸に突出し、その中央で一部消失しており、腫瘍が板間内から発生したことを強く示唆していた(Fig. 3)。左総頸動

公立豊岡病院脳神経外科

Address reprint requests to: E. Kurihara, M.D., Department of Neurosurgery, Kobe University, 7-5-1 Kusunoki-cho, Chuo-ku, Kobe 650.

受稿 1987年12月28日 受理 1989年3月29日

Fig. 1 Skull roentgenograms, anteroposterior (*left*) and lateral views (*right*). Note an osteolytic lesion (5 × 5 cm in size) in the left pterional region.

Fig. 2 Pre- (*upper left*) and postcontrast axial (*upper right*) and postcontrast coronal (*lower*) computed tomography (CT) scans, showing enhancement of the tumor extending into the intracranial cavity.

Fig. 3 Bone CT scan, showing convex appearance of the skull bone with the inner surface partially destructed.

脈亨では中硬膜動脈を feeder として骨透亮像直下に注ぎ込み, vascularization を形成しているのがみられた (Fig. 4).

以上より, 頭蓋骨板間より発生し頭蓋内へ進展した髄膜腫と診断し, 腫瘍摘出および頭蓋骨形成術を施行した.

手術: 骨透亮像を囲むように馬蹄形の皮膚切開を加え, 皮膚を反転した. 骨膜, 頭蓋骨外板に異常はなかった. 腫瘍をめぐるように craniectomy を行い, 腫瘍と癒着していた硬膜も同時に切除した. 硬膜の内面に異常はなく, 外面の癒着部位でも腫瘍との連続性を認めず, 脳表も圧迫所見のみであった.

病理学的所見: 組織像は psammoma body を持つ典型的な meningotheiomatous meningioma の像を呈していた (Fig. 5).

術後経過: 術後一過性に右片麻痺の悪化を認めたが, 運動性失語とともに徐々に改善した.

III 考 察

頭蓋骨内髄膜腫は, その発生部位あるいは主な増殖部位が頭蓋骨であるものに対して Azar-Kia ら²⁾が最初に用いた名称である. 硬膜外に原発する髄膜腫の総称としては, extracalvarial meningioma^{3,6,21)}, primary extracranial meningioma^{11,16,19)}, epidural meningioma あるいは ectopic meningioma^{7,8)}などのさまざまな名称があり, 一定していない. さらに, Siegel ら¹⁸⁾は硬膜外髄膜腫を発生部位別に 3 群に分類している. すなわち, 第 1 群: 副鼻腔から発生するもの, 第 2 群: 頭蓋骨の外表面から発生するもの, 第 3 群: 骨に関係なく頭皮に発生するもの. この分類にあてはめれば, 本症例は一応第 2 群に属すると思われるが, 頭

Fig. 4 Left carotid angiogram, lateral view of the arterial phase, showing vascularization from the middle meningeal artery toward the osteolytic skull lesion (arrows).

Fig. 5 Photomicrograph of the surgical specimen, showing meningotheliomatous meningioma with many psammoma bodies. HE stain, $\times 400$.

蓋骨内に原発したものと二次的に頭蓋骨内に増殖したものとの区別はなされていない。また、Lopez ら¹⁰⁾は組織発生的な観点から分類するのがより実用的であるとし、次の3型を提唱した。すなわち、1型：胎生期において皮膚または皮下に迷入した arachnoid cell から発生したもの、2型：神経鞘に沿った arachnoid cell rests から発生するもの、3型：中枢神経の通常の髄膜腫が骨または骨欠損を通じて浸潤増殖したものとしている。本症例の場合は頭蓋骨内と頭蓋内に腫瘍が存在し、上記分類のいずれであるかが問題となるが、この点に関しては骨に window level を合せたCT所見が診断に有用であった。すなわち、頭蓋骨内板が凸状に脳内に突出し、その一部が破壊されている所見

Table 1 Reported cases of intraosseous meningioma

Case No.	Author (Year)	Age/Sex	Location	Suture	X-ray finding
1	Alpers and Harrow (1932) ¹⁾	23/M	lt F		hyperostosis
2	New and Devine (1947) ¹²⁾	40/F	rt F		hyperostosis
3	Wagman <i>et al.</i> (1960) ²²⁾	33/F	lt F		hyperostosis
4		43/F	rt FT	coronal	hyperostosis
5		69/F	lt T		hyperostosis
6	Siegel and Anderson (1966) ¹⁸⁾	53/M	rt F	bregma	hyperostosis
7	Oscar <i>et al.</i> (1966) ¹⁴⁾	58/M	rt F		hyperostosis
8	Waga <i>et al.</i> (1970) ²¹⁾	50/F	rt T	squamous	hyperostosis
9	Azar-Kia <i>et al.</i> (1974) ²⁾	50/F	rt FT	pterion	hyperostosis
10		57/F	rt FT	coronal	hyperostosis
11		58/F	rt P	sagittal	rarefaction
12		60/F	rt F	coronal	hyperostosis
13	McWhorter <i>et al.</i> (1976) ¹¹⁾	42/M	lt T		osteolysis
14	Ito <i>et al.</i> (1977) ⁶⁾	75/M	rt FT	sagittal	osteolysis
15	Hamada <i>et al.</i> (1977) ⁵⁾	71/F	lt P	coronal	osteolysis
16	Rahoria and Gulati (1978) ¹⁷⁾	30/F	rt FT		hyperostosis
17	Pearl <i>et al.</i> (1979) ¹⁵⁾	44/F	rt F	bregma	osteolysis
18	Konishi <i>et al.</i> (1984) ⁹⁾	57/M	lt FP	coronal	hyperostosis
19	Young (1983) ²³⁾	71/M	lt FT	coronal	osteolysis
20	Onoda <i>et al.</i> (1985) ¹⁹⁾	38/F	m P	sagittal	hyperostosis
21	Present case	82/F	lt FT	pterion	osteolysis

F indicates frontal; T, temporal; P, parietal; FT, frontotemporal; FP, frontoparietal; m, middle.

は、腫瘍の本体が頭蓋骨内で成長・増大し、頭蓋内へと進展していったものであることを示すと考えられた。また、手術による摘出標本で腫瘍と硬膜との連続性は否定された。本症例は、あえて Lopez らの分類に準ずるならば1型に属するものと判断されるが、縫合線部に一致した頭蓋骨内より発生している点より、縫合線部へ arachnoid cell が迷入し、その結果生じたものと考えたほうが妥当であろう。

頭蓋骨髄膜腫は cranial vault 以外に orbital roof⁸⁾, nasal

bone¹²⁾ などでの発生の報告もみられるが, cranial vault に限った腫瘍で文献上記載のはっきりしているものは, 本症例も含め, 21例であった (Table 1)^{1,2,5,6,9,11,15,17,18,21-23)}. 年齢は23~82才, 平均53才で成人に多く, 性差は男性7例, 女性14例で女性に多かった. この点は通常の髄膜腫と同じ傾向を示した. 症状については, 頭痛のみのものから本症例のように麻痺, 失語をきたすものまでさまざまであるが, 一般に症状出現以前にすでに頭皮下腫瘍を自覚していることが多いようである. 発生部位が縫合線部, 特に冠状縫合部に多いことが特徴で, なかには縫合線部以外には発生しないと断定している報告さえある^{2,16,18)}. このことは本腫瘍の発生機序を考える上で重要で, すなわち本腫瘍が頭蓋骨に原発したものなら arachnoid cell の縫合線部内への迷入説^{2,18)}, また頭蓋骨外腫瘍が頭蓋骨内に増殖したものなら骨縫合の抵抗減弱部を通しての伸展説を裏付けるものである. 一方, 外傷との関連について言及している報告もあり^{5,20)}, ①受傷時の骨折線内に硬膜の一部が取り込まれ, そこから後になって髄膜腫が発生した, ②もともと髄膜の一部が縫合線内に取り込まれており, 外傷が腫瘍性増殖に対するなんらかの誘引となったという説が推察されている. 本症例も外傷の既往を認めるが, 受傷から症状出現まで3週間と短いため, いずれにしても外傷との関連は否定的である.

頭蓋単純写上の所見では hyperostosis を示すものが多く, 本症例のように osteolytic な所見を示すものは珍しい¹⁵⁾. osteolytic な所見を示す理由については, ①腫瘍の増殖が速い, ②発生の初期の段階であるということが考えられるが, 必ずしもすべての症例に当てはまるとは言えない. 病理学的には meningotheliomatous type が多く, また psammoma body を高頻度に認めることも一つの特徴である⁵⁾.

Ⅳ ま と め

1. osteolytic な所見を示した頭蓋骨内髄膜腫の1症例を報告した.

2. 今までに報告された20症例の頭蓋骨内髄膜腫に本症例を加え, その臨床, 神経放射線および病理学的所見を検討し, 考察を加えた.

本論文の要旨は, 第26回近畿脳腫瘍研究会(1987年9月, 大阪)において発表した.

文 献

1) Alpers BJ, Harrow R: Cranial hyperostosis: Associated with an overlying fibroblastoma. *Arch Neurol Psychiat* 28: 339-356, 1932

- 2) Azar-Kia B, Sarwar M, Marc JA, Schechter MM: Intraosseous meningioma. *Neuroradiology* 6: 246-253, 1974
- 3) Balaparameswara Rao SB, Dinakar I, Sreenivasa Rao KS: Giant intracranial epidural meningioma. Case report. *J Neurosurg* 35: 748-750, 1971
- 4) de Caro R, Giordano R, Parenti A, Zuccarello M: Osteomatous meningioma: Report of two cases. *Acta Neurochir (Wien)* 60: 313-317, 1982
- 5) 浜田博文, 門田紘輝, 上津原甲一, 朝倉哲彦, 猪鹿倉武: 頭蓋外髄膜腫 extracalvarial meningioma の1例. *脳神外科* 5: 633-639, 1977
- 6) 伊藤昌徳, 富沢仁昭, 高木 偉, 石井昌三: Extracalvarial meningioma. *脳神外科* 5: 465-471, 1977
- 7) Kernohan JW, Sayre GP: Ectopic meningioma, in: *Tumors of the Central Nervous System*. Washington, DC, Armed Forces Institute of Pathology, 1952, p 101
- 8) Kobayashi S, Kyoshima K, Nakagawa F, Sugita K, Maruyama Y: Diploic meningioma of the orbital roof. *Surg Neurol* 13: 277-281, 1980
- 9) 小西善史, 門脇親房, 塩貝敏之, 小柏元英, 竹内一夫, 福住直由: 頭蓋骨内髄膜腫 intraosseous meningioma を伴った骨腫 osteoid osteoma の1例. *脳神外科* 12: 1403-1408, 1984
- 10) Lopez DA, Silvers DN, Helwig EB: Cutaneous meningiomas: A clinicopathologic study. *Cancer* 34: 728-744, 1974
- 11) McWhorter JM, Ghatak NR, Kelly DL Jr: Extracranial meningioma presenting as lytic skull lesion. *Surg Neurol* 5: 223-224, 1976
- 12) New GB, Devine KD: Neurogenic tumors of nose and throat. *Arch Otolaryng (Chicago)* 46: 163-179, 1947
- 13) 小野田公夫, 今井周治, 若尾哲夫, 千葉成宏: 頭蓋骨に主座を置き術前に肺転移をきたしていた meningioma の1例. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 25: 306-310, 1985
- 14) Oscar *et al.*, cited in 5)
- 15) Pearl GS, Takei Y, Parent AD, Boehmn M Jr: Primary intraosseous meningioma presenting as a solitary osteolytic skull lesion: Case report. *Neurosurgery* 4: 269-270, 1979
- 16) Pendergrass EP, Hope JW: An extracranial meningioma with no apparent intracranial source. Report of a case. *Amer J Roentgen* 70: 967-970, 1953
- 17) Rajoria SK, Gulati DR: Intraosseous meningioma: A case report. *Neurology (India)* 26: 79-80, 1978
- 18) Siegel GJ, Anderson PJ: Extracalvarial meningioma: Case report. *J Neurosurg* 25: 83-86, 1966
- 19) Suzuki H, Gilbert EF, Zimmermann B: Primary extracranial meningioma. *Arch Path (Chicago)* 84: 202-206, 1967
- 20) Tutner OA, Laird AT: Meningioma with traumatic etiology. *J Neurosurg* 24: 96-98, 1966
- 21) Waga S, Nishikawa M, Ohtsubo K, Kamijyo Y, Handa H: Extracalvarial meningioma: 2 cases. *Neurology (Minneapolis)* 20: 368-372, 1970
- 22) Wagman AD, Weiss EK, Riggs HE: Hyperplasia of the skull associated with intraosseous meningioma in the absence of gross

- tumor: Report of three cases. *J Neuropath Exp Neurol* 19: 111-115, 1960
- 23) Young PH: Solitary subcutaneous meningioma appearing as an osteolytic skull defect. *South Med J* 78: 1039-1040, 1983

〔別刷請求先：〒650 神戸市中央区楠町7-5-1，神戸大学脳神経外科，栗原英治〕