外傷性頭蓋骨膜洞の1例

木原 俊彦・古賀 壽男・田淵 和雄

Traumatic Sinus Pericranii

Case Report

Shunichi KIHARA, Hisao KOGA and Kazuo TABUCHI

Department of Neurosurgery, Saga Medical School, Saga

Abstract

The patient was involved in a traffic accident at the age of 1 and the left parieto-occipital scalp was contused without skull fracture. At the age of 5, an extracranial scalp mass was first noticed just beneath the multiple scalp scars. Angiography through the mass revealed that the extracranial mass cavity was connected to the superior sagittal sinus through the emissary veins. The mass located in the subgaleal, epiperiosteal space was totally resected and the connection with the intracranial sinus was closed with bone wax. Histologically, there were many capillaries and some large blood cavities with only one layered endothelium and connective tissue. Therefore, the mass was diagnosed as sinus pericranii and considered to be secondary to previous head trauma because: 1) The patient had a history of head trauma with considerably severe scalp injuries. 2) The extracranial blood sinus was located exactly beneath the traumatic scar. 3) There was no neoplastic tissue histologically. 4) No scalp mass was noticed before the traffic accident. 5) There was an elapsed time between the trauma and the growth of the mass. 6) No scalp nevus such as port-wine stain existed.

Key words: sinus pericranii, head trauma

I はじめに

頭蓋骨膜洞は頭蓋内の静脈洞と交通を有する頭皮下の血管性腫瘍であり、1850年、Stromeyer¹⁾が初めて sinus pericranii という名称を用いて以来、広くこの名が使われている。しかし、この疾患の定義に関する考え方はさまざまであり、最近の一つの病態像として捉えられる傾向にある¹⁰⁾。その成因については先天性、後天性(外傷など)、先天素因に基づく後天発症などが考えられている⁶⁾が、いまだ一定の見解は得られていない。

今回我々は、外傷を契機として発症したと考えられる頭蓋骨膜洞の1症例を経験したので、その発生機転と外傷との関連性を考察し、報告する。

II 症 例

＜患者＞ 6才, 男児

主訴: 左頭頂部腫瘍

家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1才のとき、両親と一緒に乗っていたトラックが約4.4 m下の道路に転落、頭部を打撲し、左頭頂部に約10 cmの頭皮裂傷を生じた。この際、X線写し骨折は認められていない。受傷時の意識消失の有無は不明である。その後、痙攣などの既往もなく、運動や学業成績の遅れも特に認められていない。1年ほど前に本人が初めて頭皮腫瘍に気付いたが、痛みなどもないため放置していた。しかし、頭皮腫瘍がしだいに増大傾向を呈したため、1988年8月15日、精査、治療目的にて当科入院となった。

佐賀医科大学脳神経外科

Address reprint requests to: S. Kihara, M.D., Department of Neurosurgery, Saga Medical School, 5-1-1 Nabeshima, Saga 849.

受稿 1989年2月1日 受理 1989年5月26日

Fig. 1 Gross appearance of the soft lump in the left parietal region. The mass appears in supine position or from straining (left), but disappears in the sitting position (right). Scars of the previous scalp laceration are visible.

Fig. 2 Plain (left) and enhanced (right) computed tomography scans, revealing an extracranial mass isodense with the superior sagittal sinus.

入院時所見：全身生理学的には、左頭頂部に5年前の外傷性瘢痕に接し4 cm大の半球状弾性軟の腫瘤を認め、この腫瘤は臥位や息みにより増大し、座位あるいは立位により消褪した(Fig. 1)。神経学的には異常は認められず、精神発達遅滞もみられなかった。血液生化学検査でも異常はなかった。

神経放射線学的所見：頭蓋単純X線撮影にて明らかな骨欠損は認められなかった。単純および造影CT scanともにこの腫瘤は上矢状静脈洞と同程度の吸収値を示した(Fig. 2)。直接穿刺による腫瘤の造影を行うと、腫瘤は多房性であり、導出静脈を介して上矢状静脈洞が造影され、さらに腫瘤からは多数の拡張蛇行した板間静脈と少数の頭皮静脈が流出路として描出された(Fig. 3)。これにより腫瘤と頭蓋内静脈洞との交通が確認された。

以上の結果より本症例を頭蓋骨膜洞と診断し、1988年9月23日、全身麻酔下に腫瘤全摘術を行った。

手術所見：腫瘤を取り囲むようなU字型の皮切を加え、頭皮から帽状腱膜の層まで一塊として剝離反転した。腫瘤

は厚い疎性結合組織に被われており、その層をさらに剝離すると暗赤色、表面凹凸で圧縮性のある被膜を有する腫瘤が現われてきた。次に腫瘤の周辺で骨膜を凹弧状に切開し、腫瘤を骨より剝離していくと、腫瘤の裏面は骨膜と一体化していた。さらに剝離を進めて行くと、腫瘤は一部骨膜を貫いて導出静脈と交通しており、その部位を剝離すると静脈性出血がみられた。このような pinhole 状の交通部位は数ヵ所でみられたが、すべて bone wax にて止血した。腫瘤を全摘すると、腫瘤と接する頭蓋骨に erosion が認められた。

術後、頭皮腫瘤はまったく消失し、再発はみられていない。

Fig. 3 Lateral view roentgenogram obtained by direct injection of contrast medium into the extracranial cavity. Superior sagittal sinus (arrows), diploic veins, and scalp veins are visible.

Fig. 4 Photomicrograph of the mass, showing many capillaries and widened blood cavities surrounded by abundant fibrous tissue. There is no arterial component. Endothelial lining of the cavity can be seen only in part. HE stain, $\times 40$.

組織学的所見：豊富な結合織内に多数の毛細血管の新生、および管腔の著明に拡張した血管がみられた。これらの血管壁を詳細にみると1~2層の薄い cell lining があるのみで、明らかな arterial component は認められなかった (Fig. 4)。

Ⅲ 考 察

頭蓋骨膜洞は Stromeier の報告¹¹⁾以来、一般に「頭蓋内静脈系と交通する骨膜下に位置する軟らかい血管性腫瘍で、静脈圧の上昇により出現し、圧迫や立位などにより容易に消失する特徴を持つ」と考えられてきた。しかし、いまだ明確な定義はなく、一つの病態像であり、病理学的に単一の疾患とは言えない^{3,7,9,10)}。1987年、澤村ら¹⁰⁾は放射線学および組織学的所見より過去の文献報告例を検討し、頭蓋骨膜洞を5つの型に分類している。第1型は cavernous hemangioma 類似の構造を有する多房性の嚢胞で、本邦報告例の約7割を占め、狭義の sinus pericranii とも言うべきものである。これらは明らかな arterial component を認めず、neoplasm としての血管腫とは異なったものである。第2型は capillary hemangioma や cavernous hemangioma などの腫瘍性性格を有する真の血管腫、第3型は拡張した導出静脈などの静脈瘤、第4型は頭蓋骨欠損部より突出した硬膜静脈洞、第5型はその他分類不能なものとしている。本症例はこの分類のうち第1型に合致する典型的な組織像を呈していると考えられる。

頭蓋骨膜洞の成因として、1886年、Mastin⁶⁾はそれまでの報告を先天性、特発性、外傷性の3つに分類している。Stromeier¹¹⁾は、外傷によるものは外傷性骨膜下血腫が破綻した導出静脈を介して頭蓋内静脈洞と交通し、発症するとしている。また、Mastin⁶⁾は外傷性のものはほとんどの例で骨折を伴うとしているが、この場合には逆に骨折を伴わない外傷や、本人が気付かないかあるいは忘れてしまう程度の頭部外傷も突発性として分類されることになり、異論も多い³⁾。現在では、1928年、Hahn³⁾が指摘したように、骨膜下血腫ができうる程度の軽い打撲が原因となることも多いと考えられている。Hahn は外傷により頭蓋骨周囲の小動脈と導出静脈が異常な交通性を生じるため、動脈圧により導出静脈さらには板間静脈、頭皮静脈が拡張、蛇行するとしている。さらに外傷性を疑う場合、もともと先天性の素因があり、外傷がその発見あるいは発症のきっかけになったのか、あるいは外傷により新しく生じたものであるかが問題となる。1973年、加川ら⁴⁾は、先天性のものである persistent emissary vein では頭皮内静脈と静脈洞との間に遺残導出静脈が存在して頭蓋内外の静脈循環が営まれるとし、その発症年齢は新生児、乳児期に好んで認めら

れると報告している。また先天性の場合、導出静脈が豊富で血流量が多いことや port-wine stain を伴うことが多いとされている⁴⁾。

組織学的鑑別では、1926年、Cohn の報告²⁾以後、外傷性のもは腫瘍の内壁に endothelium を認めないとされている^{8,12)}。しかし我々は、外傷性の場合でも静脈洞との交通が徐々に成立した場合は腫瘍の内壁は endothelium を保ったまま拡張しうるし、一方、交通が太く圧が高い場合でも経過が長いときにはいったん破壊された endothelium が辺縁部より再生される可能性があると考えている。本症例は組織学的には腫瘍の内壁に endothelium を認めるものの、一部明瞭でない部分があり、内腔が明らかに endothelium を持つとはいいがたいが、以下の点から外傷性であると考えた。①5年前に外傷の既往があり、受傷時の軟部組織の挫滅が瘢痕として残っている。②腫瘍は受傷部位に一致している。③組織学的に腫瘍性病変と思われる所見を認めない。④受傷前に頭皮腫瘍と思われるものはまったくなかった。⑤受傷後一定期間を経て発症している。⑥生下時 port-wine stain などの母斑に気付かれたことはない。一方、外傷性頭皮動静脈瘻との鑑別は、血管撮影や組織学的所見から動脈成分の有無や動静脈シャントの有無が重要であり、本例では動静脈瘻は否定される。

また、古くより頭蓋骨膜洞は骨膜下ないし骨膜内に存在する病変であると言われているが、組織学的に骨膜が腫瘍を被包していることを証明することは難しい。本症例も組織学的に骨膜と腫瘍との関係を明確にすることは困難であったが、手術時の肉眼的所見では Arreus ら¹⁾、Wakisaka ら¹²⁾の報告と同じく帽状腱膜下で骨膜上に存在していた。一般に外傷によって帽状腱膜下血腫ができただけの場合、血腫は縫合を越えて広がり、granulation の過程で腫瘍を形成することはまれであると考えられる。このことより、本症例では外傷により帽状腱膜下血腫ができない程度の軽い骨膜の損傷を負い、granulation の過程において骨膜下や骨膜内ではなく帽状腱膜下・骨膜上に腫瘍が形成されたと推測した。

Ⅳ 結 語

1才時に頭部外傷の既往があり、外傷を契機として発症したと考えられた6才男児の頭蓋骨膜洞の1例を経験したので、外傷との関連性について考察し、報告した。

文 献

- 1) Arreus MA, Dickmann GH, Pataro VF: Sinus pericranii (five cases). *Angiography* 7: 186-193, 1956
- 2) Cohn I: Sinus pericranii (Stromeier). Report of a case: Review

- of the literature. *Surg Gynec Obstet* 42: 614-624, 1926
- 3) Hahn EV: Sinus pericranii (reducible blood tumor of the cranium). Its origin and its relation to hemangioma and abnormal arteriovenous communication. Report of a case. *Arch Surg (Chicago)* 16: 31-43, 1928
 - 4) 加川端夫, 川島弘子, 橋本卓雄, 篠原豊明, 喜多村孝一: 脳動脈異常に関する研究(Ⅲ) —Persistent emissary veinを合併せる脳動静脈奇形—. *脳神経外科* 1: 392-402, 1973
 - 5) 熊谷力二郎, 高久 晃: Sinus pericranii の2例. *脳と神* 23: 181-184, 1971
 - 6) Mastin WM: Venous blood tumors of the cranium in communication with the intracranial venous circulation especially the sinuses of the dura mater. *JAMA* 7: 309-320, 1886
 - 7) 西村卓士, 高原衍彦, 諏訪 純, 山内康雄, 松村 浩: Sinus pericranii とその類縁疾患. 5. 症例について. 第11回日本小児外科学研究会. 東京, 1983
 - 8) Nozaki J, Kawano H, Kabuto M, Hirose K, Hayashi M: Lateral sinus pericranii. *Surg Neurol* 25: 487-490, 1986
 - 9) Ohta T, Waga S, Handa H, Nishimura S, Mitani T: Sinus pericranii. *J Neurosurg* 42: 704-712, 1975
 - 10) 澤村 豊, 阿部 弘, 杉本信志, 田代邦雄, 中村仁志夫, 後藤 聡, 高村春雄: 頭蓋骨膜洞の組織学的分類と治療上の諸問題. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 27: 762-768, 1987
 - 11) Stromeyer L: Über Sinus pericranii. *Dtsch Klin* 2: 160-161, 1850
 - 12) Wakisaka S, Okuda S, Soejima T, Tsukamoto Y: Sinus pericranii. *Surg Neurol* 19: 291-298, 1983
- [別刷請求先: 〒849 佐賀市鍋島5-1-1, 佐賀医科大学脳神経外科, 木原俊彦]