脊髄血管芽腫の手術成績と戦略—血管構築と腫瘍の大きさによる検討—

Surgery of Spinal Cord Hemangioblastoma—Strategy Based on Tumor Size and Vascular Anatomy—

長島弘泰^{*1} 大橋洋輝^{*2} 磯島 晃^{*2} 谷 諭^{*2} 村山雄一^{*2} 阿部俊昭^{*3}

はじめに

血管芽腫は、孤発例もしくは von Hippel-Lindau 病 (VHL) の部分症として発生する良性腫瘍とされている¹⁾。脊髄血管芽腫は脊髄腫瘍の2~6%を占め、軟膜下に発生することが多く、原発性脊髄内腫瘍の中では3番目の頻度とされる。

脊髄血管芽腫の標準的治療は腫瘍摘出手術であり、肉眼的全摘出により治癒が期待できる。腫瘍を覆う薄い被膜は、手術操作により容易に傷つき出血を伴う。腫瘍は血流豊富であり、止血に難渋する症例もある。したがって、piece meal による摘出は極力避けるべきであり、最善の摘出法は一塊とした全摘出である。

止血困難な出血により手術操作は困難となるため、血流がどのように供給され流出するか、つまり腫瘍の血管構築を術前に把握することの重要性はさわめて高い。しかし、脊髄血管造影所見を詳しく検討し、手術成績に及ぼす影響を考察した報告は少ない。また、術前の栄養動脈塞栓はこの困難を克服するはずであるが、その有用性には議論の余地がある。今回、われわれは腫瘍摘出術を行った脊髄血管芽腫症例において、腫瘍の大きさ、血管造影の所見、手術時間ならびに術中出血量、術前後の機能評価を評価し、腫瘍塞栓の有用性についても考察した。

対象および方法

2005年1月~2012年12月に当施設で顕微鏡下手術を行った脊髄腫瘍症例のうち、12カ月以上経過を観察した脊髄血管芽腫の19症例を対象とした。男性8例、女性11例で、そのうち4例がVHLの診断基準を満たしていた。術前の造影MRIにより、nodule型腫瘍、round型腫瘍、large型腫瘍の3型に分類した。Nodule型腫瘍は囊

胞壁や脊髄辺縁に結節状に存在する腫瘍であり、高さは隣接する椎体高以下、かつ横断面で脊柱管の2分の1以下とした。Round型腫瘍は、ほぼ脊柱管を占める腫瘍であり、高さは椎体高の1.5倍未満、かつ横断面で脊柱管の半分を超える腫瘍とした。Large型腫瘍は、上下方向に伸展した腫瘍であり、高さは椎体高の1.5倍以上、かつ横断面で脊柱管のほぼ全域を占める腫瘍とした(Fig. 1)。

術前に脊髄血管造影を7例に行い、そのうち3例に Guglielmi detachable coil (GDC) を用いた腫瘍塞栓術を行った (Table 1)。2例は摘出術の前日に腫瘍塞栓を行い (Case 2, 6)、1例は当日に行った (Case 1)。

手術前後の機能評価には McCormick スケールを用いた²⁾。術中出血量と手術時間を手術難易度の指標として記録した。

結 果

1 患者背景

19症例の平均年齢は38歳 (16~57歳) だった。19腫瘍に対し19手術を行い、すべて後方アプローチから手術顕微鏡下に全摘出した。18腫瘍は一塊として摘出したが、ほかの1腫瘍は、腫瘍の一部が tumor bed に残存し摘出を追加した (Case 1)。頸椎レベルの腫瘍は8例、胸椎は9例、腰椎は2例、うち1例が馬尾発生であった。経過観察期間は12~61月、平均31月だった。VHLの4例のうち、1例に小脳と脊髄の血管芽腫摘出の既往があり、1例に小脳血管芽腫摘出の既往があった。また、ほかの1例 (Case 3) は術後6カ月に小脳失調の症状を認め、小脳血管芽腫の摘出により症状は消失した。残りの1例は網膜血管芽腫を合併していた。

Hiroyasu Nagashima, M.D.^{*1}, Hiroki Ohashi, M.D.^{*2}, Akira Isoshima, M.D.^{*2}, Satoshi Tani, M.D.^{*2}, Yuichi Murayama, M.D.^{*2}, Toshiaki Abe, M.D.^{*3}

^{*1} 東京慈恵会医科大学葛飾医療センター脳神経外科/〒125-8506 葛飾区青戸 6-41-2 [連絡先: 長島弘泰]

Address reprint requests to: Hiroyasu Nagashima, M.D., Department of Neurosurgery, The Jikei University Katsushika Medical Center, 6-41-2 Aoto, Katsushika-ku, Tokyo 125-8506, Japan

^{*2} 東京慈恵会医科大学脳神経外科, ^{*3} 三島中央病院脳神経外科

Fig. 1 Tumor classification based on MRI findings

2 術前後の機能評価

術前の McCormick スケールでは, grade I が 14 例, grade II が 4 例, grade III が 1 例だった. 術後の McCormick スケールでは, grade I が 14 例, grade II が 3 例, grade III が 2 例だった. 術前後で比較すると, 16 例で不変 (64%), 1 例で改善 (5%), 2 例 (11%) で悪化した.

3 腫瘍分類と機能評価

術前画像により, 9 例が nodule 型, 7 例が round 型, 3 例が large 型に分類された. 1 例は C1/2 高位の脊髓腹側に位置し nodule 型だった. 術中, 脊髓表面の観察で腫瘍を認めない症例は 2 例あり, nodule 型 (Case 7) と large 型 (Case 1) (Fig. 2g) だった.

術前の McCormick スケールにより, nodule 型の 7 例が grade I, 1 例が grade II, 1 例が grade III に分類され, round 型の 6 例が grade I, 1 例が grade II に分類された. これらの症例の術後 McCormick スケールは, すべて不変だった.

一方, large 型の術前 McCormick スケールにおいて, 1 例は grade I, 2 例は grade II に分類され, 1 例は術後に 1 スケール改善し (Case 2), 2 例は 1 スケール悪化した (Case 1, 3).

4 脊髓血管撮影および栄養動脈塞栓と機能評価

Table 1 に示す 7 例に脊髓血管撮影を行い, 合併症はみられなかった. 2 腫瘍で単一の栄養動脈を認め, 5 腫瘍で複数の栄養動脈を認めた. 栄養動脈には, 前脊髓動脈 (anterior spinal artery : ASA) もしくはアダムキュービッツ動脈 (artery of Adamkiewicz : AAK) と関連したもの,

すなわち, 1 回の根動脈造影により ASA あるいは AAK と腫瘍陰影が双方とも描出されるものを認めた. その多くは ASA あるいは AAK から栄養動脈が分岐していたが, 1 症例 (Case 2) では根動脈が ASA に移行する前に栄養動脈を分岐していた. ASA と関連する栄養動脈は 2 腫瘍に, AAK と関連する栄養動脈は 2 腫瘍に認めた. すべての large 型腫瘍は複数の栄養動脈をもち, それらのうち 1 本は, ASA あるいは AAK と関連していた. 術前後の McCormick スケールで悪化した 2 症例は, いずれも AAK と関連する栄養動脈をもち, 一方, 改善した 1 症例は, ASA と関連する栄養動脈であった.

術前腫瘍塞栓は 3 例に行い, 合併症はみられなかった. 2 例で 80% 以上の腫瘍陰影が消失し, ほぼ complete embolization が得られた. ほかの 1 例では, 両側 T10 肋間動脈の造影により腫瘍が描出され, 左側の栄養動脈は AAK から分岐していた (Fig. 2). 左側の塞栓は AAK 閉塞の危険を伴うため右側栄養動脈のみを塞栓し, 50% 程度の partial embolization にとどめた. Complete embolization が得られた 2 症例における術後 McCormick スケールはともに grade I であり, 1 例の改善例が含まれていた. 一方, partial embolization の 1 症例は術後に悪化をきたした.

5 術中出血量および手術時間と栄養動脈塞栓の効果

全体として, 平均出血量は 183 ml (10~755 ml), 平均手術時間は 305 分 (195~655 分) だった. 腫瘍分類別に見た平均出血量と平均手術時間は, それぞれ nodule 型で

Fig. 2 MRI, trans-arterial embolization, and intraoperative findings in Case 1

Sagittal (a) and axial (b) images of preoperative contrast-enhanced MRI show large type tumor at T10-11. Spinal angiography shows that the right T10 intercostal artery demonstrated tumor stain (*) (c) and that the left T10 intercostal artery demonstrated both of the tumor stain (*) and AAK (arrow head) (d). TAE was performed in the right feeding artery with GDC (e, f). The tumor was located completely intramedullary (g), and gross total resection was achieved (h).

Table 1 Seven patients with preoperative angiography

No	Age/sex	VHL	Tumor level	Tumor type	Feeder	TAE	Clinical grade		Blood loss (ml)	Op time (min)
							Pre	Post		
1	26/F	N	T10-11	Large	Multiple/AAK	Partial	II	III	350	655
2	22/F	N	C5-6	Large	Multiple/ASA	Complete	II	I	50	230
3	35/F	Y	L3-4	Large	Multiple/AAK	N	I	II	755	530
4	34/F	N	T12	Round	Multiple/ASA	N	I	I	220	329
5	16/M	Y	T4/5	Round	Multiple	N	I	I	95	278
6	31/F	N	T3/4	Round	Single	Complete	I	I	300	328
7	48/M	N	T7	Nodule	Single	N	I	I	100	257

VHL : von Hippel-Lindau disease, TAE : trans-arterial embolization, Clinical grade : McCormick's clinical and functional grading scale of spinal cord, Pre : preoperative, Post : postoperative, Op time : operative time, C : cervical, T : thoracic, L : lumbar, AAK : artery of Adamkiewicz, ASA : anterior spinal artery

137 ml (10~410 ml) と 260 分 (215~344 分), round 型で 156 ml (15~329 ml) と 291 分 (230~319 分), large 型で 385 ml (50~755 ml) と 471 分 (230~655 分) であった (Fig. 3).

Complete embolization を行った Case 2 は出血量, 手術時間ともに著明に減少し, McCormick スケールでの術後改善が得られた. 一方, partial embolization を行った Case 1 は出血量と手術時間に効果はみられず, 術後悪化をきたした.

考 察

今回の結果から, 大型の腫瘍は複数の栄養動脈を持ち, それらの中には ASA や AAK に関連したものが含まれていた. 脊髄血管芽腫の詳細な血管撮影所見を記載し

た文献は少ないが, Roonprapunt ら³⁾は, 19 例中 9 例に行った脊髄血管撮影において, 3 例に ASA に関連した栄養動脈を認めそれらはすべて脊髄腹側の軟膜に接する腫瘍であったと報告した. Biondi ら⁴⁾が報告した 4 例の下位脊椎高位 (脊髄円錐, 馬尾, 終糸) に発生した血管芽腫はすべて ASA または AAK が関与した栄養動脈を有し, その中で詳細が記載された 2 症例はいずれも大型であり複数の栄養動脈により腫瘍が描出された. また, Corneliussen らの報告に, ASA から分岐した複数の動脈と椎骨動脈筋肉枝からの栄養動脈をもった C1-2 の大型腫瘍が記載されている⁵⁾. これらの報告は, 上述した知見と一致していた. ASA や AAK からの分岐動脈が栄養動脈である場合, 後方進入手術に際し, 腫瘍の腹側に栄養動脈が位置する可能性が高く, 大型腫瘍の手術に際し注意を要

する。

術後の成績不良の予測因子として、脊髄腹側に発生した腫瘍、完全に髄内に埋没している腫瘍、大きな腫瘍、術前の神経所見不良例、脊髄円錐・馬尾に発生した腫瘍が報告されている^{6,7)}。腫瘍の大きさに関し、Lonser ら⁶⁾は44例のVHLにおける55手術の検討において、幅×高さ×長さ×0.5より計算した腫瘍体積が 500 mm^3 を超えると術後の悪化をきたしやすいと報告した⁶⁾。われわれの症例におけるround型腫瘍の体積を同様の方法で算出すると、 $288\sim1,716\text{ mm}^3$ 、平均 $1,017\text{ mm}^3$ であった。したがって、われわれが分類したlarge型腫瘍は、Lonserの示した“large tumor”より大型であるといえる。この分類によると腫瘍の大きさによって手術時間は有意に延長され、手術が困難になることが示唆された。しかし、今日の顕微鏡下手術手技や手術機器の発達、また手術支援法により、困難な症例でも良好な結果が得られる可能性はある。われわれの症例でも1例のlarge型腫瘍において、出血量・手術時間の短縮と術後改善が得られた。一方、2例の術後悪化をきたしたlarge型腫瘍のうち、1例は馬尾発生、もう1例は完全に髄内に埋没した腫瘍であり、上述の予測因子の2項目を有していた。加えて、いずれの腫瘍もAAKと関連をもつ栄養動脈により血液が供給されていた。これらの術後悪化の予測因子が重複することにより、術後悪化をきたす危険が高まると考えられた。

栄養動脈塞栓に関し、ほぼ完全に塞栓できれば大型腫瘍の手術であってもより少ない出血量とより短い手術時間で摘出を終えられることが今回の結果により示唆された。しかし、栄養動脈塞栓術の効果に懐疑的な報告もある⁸⁾。それらは、多くの症例で塞栓術を用いずに良好な手術成績が得られることを強調し、塞栓術に伴う脊髄腫脹や虚血などの合併症を危惧している。一方、栄養動脈塞栓術は安全に行える手技であり、腫瘍摘出時の印象として少ない出血量でより容易に摘出し得たという肯定的な報告も散見される^{4,9)}。今回の結果は、出血量と手術操作の容易さに関し、より客観的に塞栓術の有用性を支持するといえる。したがって、大型腫瘍の摘出に際し、術前塞栓術を積極的に検討すべきであると考ええる。

結 語

大型の脊髄血管芽腫は複数の栄養動脈から血液を供給されることが多い。その栄養動脈の中には、AAKを含めたASAと関連している可能性が高い。腫瘍の大きさに基

Fig. 3 Operative time and blood loss

づく分類で、大型腫瘍の手術時間は延長し、手術の難易度が増すことが示唆された。このような大型腫瘍の手術に際し、術前に栄養動脈塞栓術を行うことは出血量と手術時間の短縮をもたらし得る方法であり、積極的に考慮すべきであろう。

文 献

- 1) Lonser RR, Glenn GM, Walther M, et al : von Hippel-Lindau disease. *Lancet* **361** : 2059-2067, 2003
- 2) McCormick PC, Torres R, Post KD, et al : Intramedullary ependymoma of the spinal cord. *J Neurosurg* **72** : 523-532, 1990
- 3) Roonprapunt C, Silvera VM, Setton A, et al : Surgical management of isolated hemangioblastomas of the spinal cord. *Neurosurgery* **49** : 321-327, 2001
- 4) Biondi A, Ricciardi GK, Faillot T, et al : Hemangioblastomas of the lower spinal region : report of four cases with preoperative embolization and review of the literature. *AJNR Am J Neuroradiol* **26** : 936-945, 2005
- 5) Cornelius JF, Saint-Maurice JP, Bresson D, et al : Hemorrhage after particle embolization of hemangioblastomas : comparison of outcomes in spinal and cerebellar lesions. *J Neurosurg* **106** : 994-998, 2007
- 6) Lonser RR, Weil RJ, Wanebo JE, et al : Surgical management of spinal cord hemangioblastomas in patients with von Hippel-Lindau disease. *J Neurosurg* **98** : 106-116, 2003
- 7) Takai K, Taniguchi M, Takahashi H, et al : Comparative analysis of spinal hemangioblastomas in sporadic disease and Von Hippel-Lindau syndrome. *Neurol Med Chir (Tokyo)* **50** : 560-567, 2010
- 8) Clark AJ, Lu DC, Richardson RM, et al : Surgical technique of temporary arterial occlusion in the operative management of spinal hemangioblastomas. *World Neurosurg* **74** : 200-205, 2010
- 9) Parker F, Aghakhani N, Ducati LG, et al : Results of microsurgical treatment of medulla oblongata and spinal cord hemangioblastomas : a comparison of two distinct clinical patient groups. *J Neurooncol* **93** : 133-137, 2009