

ガンマナイフ治療5年後に症候性腫瘍内出血を来たした 聴神経鞘腫の1例

高平一樹、春原匡、瀬尾善宣、中川原譲二、高梨正美、
大里俊明、原敬二、野呂秀策、前田理名、中村博彦
中村記念病院 脳神経外科 公益財団法人北海道脳神経疾患研究所

Symptomatic Intratumoral Hemorrhage in Acoustic Schwannoma 5 years later after Gamma Knife Therapy : A Case Report

Kazuki TAKAHIRA, M.D., Tadashi SUNOHARA, M.D., Yoshinobu SEO, M.D., Jyoji NAKAGAWARA, M.D.,
Masami TAKANASHI, M.D., Toshiaki OSATO, M.D., Keiji HARA, M.D., Shusaku NORO, M.D.,
Masana MAEDA, M.D., Hirohiko NAKAMURA, M.D.

Department of Neurosurgery, Nakamura memorial hospital and Hokkaido Brain Research Foundation,
Sapporo, Japan

Abstract

We experienced a case of acoustic schwannoma in which symptomatic hemorrhage occurred 5 years later after γ -knife radiosurgery. A 50-years-old man who had been done γ -knife radiosurgery for rt. acoustic schwannoma visited the department of neurosurgery of our hospital with a sudden palsy and sensory disorder of rt. facial. Magnetic Resonance Image (MRI) revealed the hemorrhage into rt. acoustic schwannoma. After a couple of times, the hematoma got bigger and rt. facial palsy got worse. So we had to do the emergent surgery for removal of the hematoma and the tumor as much as possible. After the surgery, the symptom got better step by step. At last, the patient could close his eyes and swallow smoothly by himself. He could go home at 64 days after the surgery.

【はじめに】

症候性腫瘍内出血をきたす神経鞘腫は比較的稀といわれている¹⁾。中でも、ガンマナイフ後に症候性腫瘍内出血を来たした神経鞘腫は更に稀であり、同症例について報告は渉猟しうる限りで少ない²⁾。今回、ガンマナイフ施行5年後に症候性腫瘍内出血をきたした聴神経鞘腫の1例を経験したので報告する。

【症 例】

患者：50歳、男性

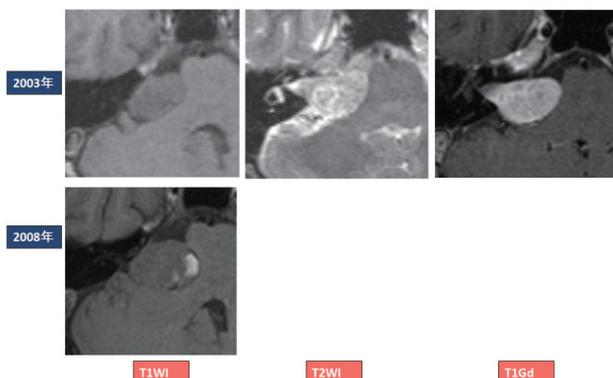
主訴：右顔面麻痺、右顔面感覚障害

現病歴：2003年9月、右聴神経鞘腫に対してガンマナイフ（中心線量28Gy/辺縁線量12Gy）を施行した。経過中、画像所見上に明らかな変化を認めなかったが、ガンマナイフ施行5年後に突然に右顔面感覚障害・ふらつきが出現し、画像上で腫瘍内出血を認めた為、入院となった。

【入院時現症】

意識清明、右顔面神経麻痺：House-Brackmann Grade3、右顔面感覚障害（tactile V1 0/10, V2 3/10, V3 3/10, pinprick V1 0/10, V2 4/10, V3 4/10）、右聴力障害（Gardner-Robertson class 3（PTA 86.3dB, SDS 70%））を呈していた。

画像

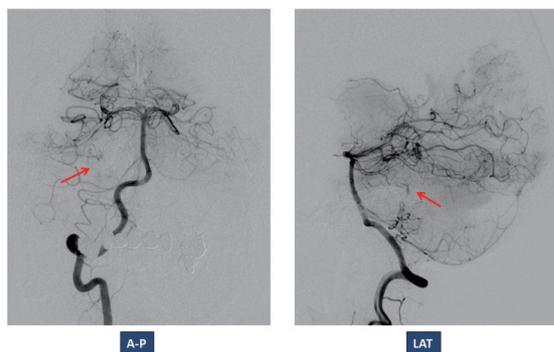


(Fig.1)

頭部MRIで2003年時、右小脳橋角部に比較的均一に造影される腫瘍性病変を認めた。

2008年時、腫瘍内部に出血を来たし、脳幹・周囲組織への強い圧迫を認めた。

Angiogram



(Fig.2)

FAG：右SCA branchよりわずかな腫瘍濃染像を認めた。その他、脳動脈瘤や血管奇形を認めなかった。

【画像所見】

頭部MRIで右小脳橋角部に比較的均一に造影される腫瘍性病変を認め、腫瘍内部に血腫（2.9cm）を認めた（Fig.1）。脳血管撮影では右上小脳動脈（SCA）よりわずかに腫瘍陰影を認めたが、その他には栄養血管を認めなかった。また、脳動脈瘤や血管奇形などを認めなかった（Fig.2）。

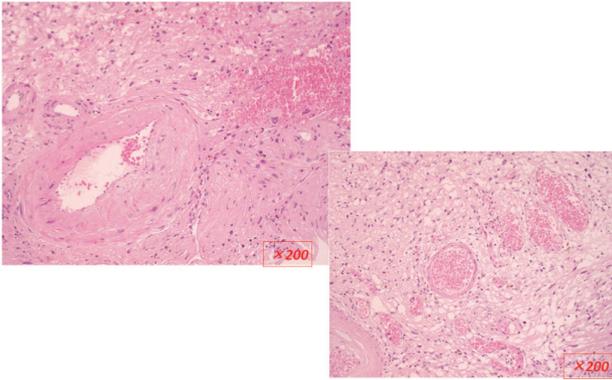
【入院後経過】

入院後、徐々に症状が増悪し、画像上で腫瘍内出血の拡大（2.9cmより3.7cmへ）を認めた。病日18、右顔面神経麻痺が悪化（H-B Grade5）した為、lateral suboccipital approachによる緊急血腫/腫瘍摘出術を施行した。腫瘍を内減圧すると、内部に血管に富む海綿状血管腫様の成分を認めた。同病変は比較的硬く摘出困難であった為、可能な限り摘出を行った。また、腫瘍被膜が脳幹・小脳・脳神経と強く癒着しており、完全な剥離が不可能であった為、腫瘍を部分摘出にとどめ、手術を終了した。術後、頭部MRIでは腫瘍径：1.8cmと術前よりのmass reductionを確認し、脳幹への圧迫も改善した。

【病理所見（H.E.）】（Fig.3）

弱好酸性の紡錘情胞体と楕円形-桿状核を有するspindle cellsの増生を認め、Antoni type A regionとAntoni type B regionの混在するWHO Gr1 schwannomaの所見を認めた。血管壁の硝子性肥厚や比較的豊富な腫瘍栄養血管を認め、

病理(H.E.)



(Fig.3)
弱好酸性の紡錘形細胞と楕円形-桿状核を有するspindle cellsの増生を認め、schwannomaの所見であった。豊富な栄養血管と血管壁の硝子性肥厚(矢印)を認めたが、angiomaなど明らかな血管性病変の合併を認めなかった。

形状いびつな異常血管集簇の周囲にはhemogiderin沈着を認めた。Angiomaなど明らかな血管奇形の合併を認めなかった。

【術後経過】

術後より右顔面神経麻痺は改善し、H-B Grade4となった。右顔面感覚障害や嚥下障害も改善し、自力で経口摂取が可能となった。最終的には、右顔面神経麻痺はH-B Grade3程度まで改善し、POD64に自宅退院となった。

【考 察】

本症例は、ガンマナイフ施行5年後に症候性腫瘍内出血をきたした聴神経鞘腫の1例である。

神経鞘腫において、組織学的には全神経鞘腫の6.7%¹⁾で腫瘍内出血を認めるという報告がある一方で、症候性出血に至るものは1%未満³⁾と少なく、稀な病態であったと考えられる。

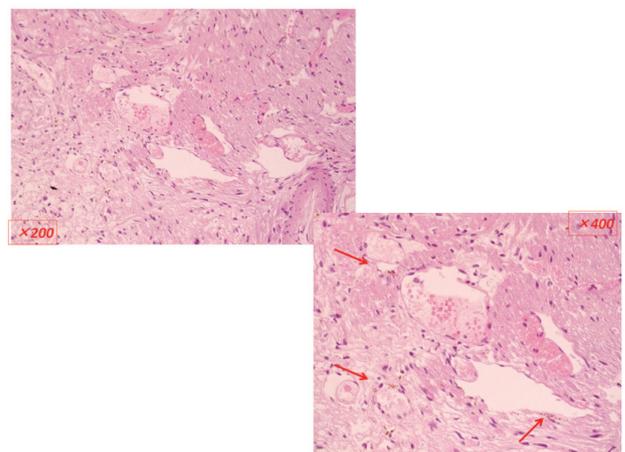
症候性腫瘍内出血をきたす神経鞘腫の臨床的特徴として、①腫瘍の大きさ(径28mm以上、平均33mm)¹⁾、②嚢胞形成(15例中4例で出血)⁴⁾が言われている。本症例においては、画像上では明らかな嚢胞形成やその他の形状変化などを認めなかったが、ガンマナイフ治療以前より腫瘍の大きさが径28mm以上と、臨床的特徴の1項目を満たしていた。

また、病理学的特徴としては、①壁の菲薄化を伴う血管拡張の増加^{4) 5)}、②異常血管の集簇⁴⁾、③Angiomaなど血管奇形の合併^{5) 6)}が言われている。本症例では、明らかな血管奇形の合併を認めなかったが、形状いびつな異常血管の集簇を認め、症候性出血をきたしうる腫瘍性病変であった可能性が考えられた。

以上より、組織学的・病理学的に考慮すると、本症例の神経鞘腫は症候性腫瘍内出血を来しうる可能性がガンマナイフ治療以前よりあったと考えられた。

次に、ガンマナイフによる症候性腫瘍内出血への影響について、放射線治療による出血率の有意な上昇を認めないといった報告⁷⁾を認める一方で、ガンマナイフ治療後5年以上経過してから出血した神経鞘腫の3例報告を認める^{2) 8)}。同文献では、遅発性放射線障害の出血への関連性が疑われていたが、現時点ではガンマナイフによる症候性腫瘍内出血への影響は未だ結論に至っていない。

遅発性放射線障害の特徴的な病理学的所見として、①血管壁の硝子化(照射部位やその周囲)、②動脈硬化や血管内皮の肥厚、血管内腔の狭小化があげられる。本症例において、血管壁の硝子性肥厚と形状いびつな異常血管集簇を認め、遅発性放射線障害の影響があったと予想される。異常血管集簇の周囲にhemogiderin沈着を認めたことから、慢性的に腫瘍内出血を来していたと予想され、腫瘍内血管が脆弱になっていた可能性が考えられた。本症例において、確証には至らないが、遅発性放射線障害の



(Fig.4)
形状いびつな異常血管の集簇(200倍)とその周囲にHemogiderinの沈着(400倍、矢印)を認めた。

影響により、血管壁が硝子化する事し、血管が破綻しやすくなった結果、症候性腫瘍内出血が起きた可能性が考えられた。今後、同様の症例を積み重ね、症候性出血を来す可能性のある神経鞘腫における放射線治療の出血に対する影響を検討していく必要があると思われる。

【結 語】

症候性腫瘍内出血をきたした聴神経鞘腫の1例を経験したので報告した。本症例では、腫瘍の大きさや腫瘍内の異常血管の集簇より、症候性腫瘍内出血を来しやすい腫瘍であったと考えられた。

遅発性放射線障害によって症候性腫瘍内出血が惹起された可能性が疑われた。

【Reference】

- 1) : Significance of hemorrhage into brain tumors: clinicopathological study; Kondziolka D, Bernstein M, Resch L, Tator CH, Fleming JF, Vanderlinden RG, Schutz H, J neurosurg 67: 852-857, 1987
- 2) : Radiosurgery for acoustic neuromas: results of low-dose treatment; Iwai Y, Yamanaka K, Shiotani M, Uyama T, Neurosurgery 53: 282-286, 2003
- 3) : Tumor-associated hemorrhage in patients with acoustic neuroma; Odabasi AO, Buchman CA, Morcos JJ, Am J Otol 21: 706-711, 2000
- 4) : Acoustic neurinomas with large cystic components: a clinical and pathological study of 3 cases; Asano K, Ebina K, Sekiya T, Suzuki S, No shinkeiGeka 23: 1075-1082, 1995
- 5) : Neurinomas presenting as spontaneous intratumoral hemorrhage; Asari S, Katayama S, Itoh T, Tsuchida S, Furuta T, Ohmoto T, Neurosurgery 31: 406-411, 1992
- 6) : Combined neurilemmoma and angioma. Tumor of ectomesenchyme and a source of bleeding; Kasantikul V, Netsky MG, : J Neurosurg 50: 81-87, 1979
- 7) : Intratumoral bleeding in meningioma after gamma knife radiosurgery.; Kwon Y, Ahn JS, Jeon SR, Kim JH, Kim CJ, Lee JK, Kwun BD, Lee DH, Kim SY, J Neurosurg 97: 657-662, 2002

- 8) : Intratumoral Hemorrhage in Acoustic Neurinoma after Gamma Knife Therapy : A Case Report; Toshinari M, Hiroshi A, Teruo S, Masakazu K, Taku O, Kuniaki O, Akira O, Jpn J Neurosurg (Tokyo) 14: 641-648, 2005