

MRI 上10個以上の海綿状血管腫が 確認された1例

安齋公雄、佐々木雄彦、武田利兵衛、荒 清次
橋本郁郎、川合 裕、佐土根朗、山口日出志
中村順一、末松克美*

Multiple Cavernous Angioma

—Report of a Case with More Than Ten Lesions Recognized by Magnetic Resonance Imaging—

Kimio ANZAI, Takehiko SASAKI, Rihei TAKEDA, Seiji ARA,
IKUO HASHIMOTO, Yutaka KAWAI, Akira SATONE, Hideshi YAMAGUCHI,
Jun-ichi NAKAMURA and Katsumi SUEMATSU*

*Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital, Sapporo, Japan and
Hokkaido Brain Research Foundation, Sapporo, Japan.

Summary : Sixty two-years-old male, who had long time history of epilepsy, was transferred suffering sudden disturbance of consciousness.

Paraventricular and intraventricular hemorrhage with the signs of acute hydrocephalus was disclosed by X-ray CT and multiple irregular high density areas in both supra- and infratentorial region were opacified simultaneously.

Emergent CSF drainage from frontal horn of the lateral ventricle was performed and followed by ventriculo-peritoneal shunt at one month later. Left occipital and paraventricular lesions were excised by left occipital craniotomy at chronic stage and pathological diagnosis of cavernous angioma was confirmed.

MRI revealed other several lesions clearly as mixed intensity core with surrounding low intensity rim.

Superiority of MRI for diagnosis of cavernous angioma especially in posterior fossa and brain stem was enhanced and possibility of radical surgical excision of brain stem lesions were considered.

Key words :

- cavernous angioma
- brain stem
- multiplicity
- surgery
- magnetic resonance imaging

1. はじめに

海綿状血管腫 (cavernous angioma) は、約25%が多発性のものであると言われていたが、過去の報告例の多

くは4~5個程度の多発例である。また、かつては occult vascular malformation とも言われた無症候性の cavernous angioma が、MRI の出現により高頻度に発見されるようになった。今回我々は、MRI 上10個以上の

多発性海綿状血管腫が確認された1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

2. 症例 62歳、男性

1. 現病歴

昭和30年(27歳時)より痙攣発作をくり返し、抗痙攣剤の投与を受けていた。昭和63年2月4日、当院外来受診し、右同名半盲を認める。単純CTでは、橋・第四脳室底部・左前頭葉底部～尾状核頭部・左後頭葉・右側脳室外側等に辺縁不整、大小不同の高吸収域が認められたが、外来にて経過観察とした。

平成2年2月6日、屋根の雪降ろし中、約2mの高さから転落し当院救急外来に搬送された。

2. 入院時現症

搬送時、開眼せず、痛み刺激に対してわずかに手足を動かし顔をしかめる動作が見られるのみで、J. C. S. で200、G. C. S. で6点(E₁V₁M₄)であった。瞳孔不同(右>左)を認めた。

3. 神経放射線学的所見

搬入直後の単純CTにおいて、左視床内側部、及び第三・左側脳室内に血腫を認め、急性水頭症の所見を呈するとともに、左前頭葉・左後頭葉・右第四脳室周囲・両側側脳室外側等に多数の辺縁不整の高吸収域を認めた(Fig. 1)。造影CTにおいては、上記の高吸収域が軽度

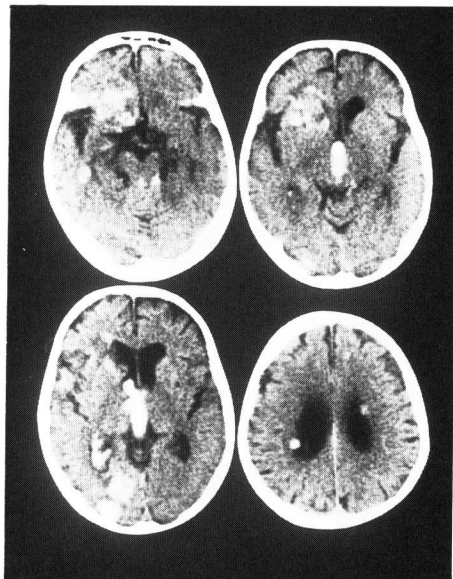


Fig. 1 Plain CT on admission. Hemorrhage in left thalamus and ventricles is noted and multiple high density lesions in left frontal, left temporal, left occipital and paraventricular area are demonstrated.

に増強された(Fig. 2)。

脳血管造影では、左後頭葉に avascular mass を認める他に、導入動脈、導出静脈、venous pooling 等の明らかな所見は認められなかった(Fig. 3)。

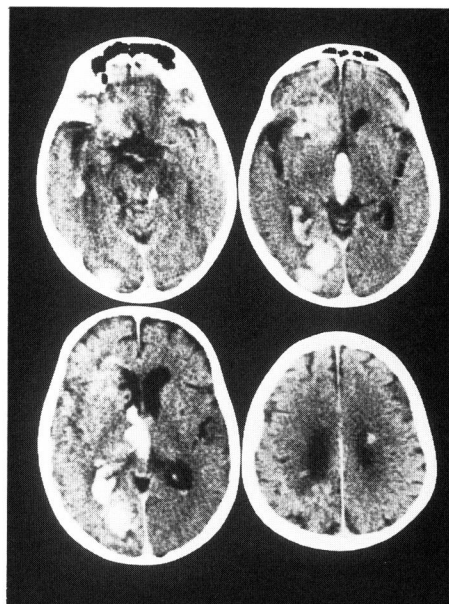


Fig. 2 Contrast medium enhanced CT ; left frontal and parietal lesions were slightly enhanced.

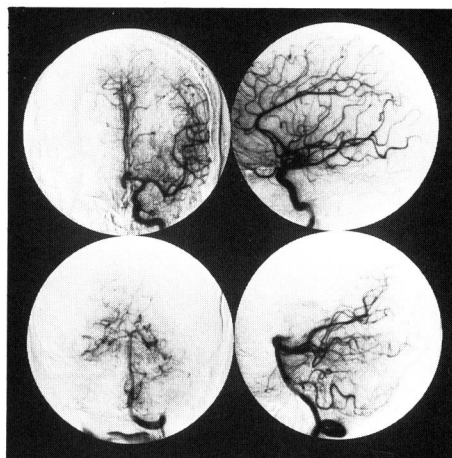


Fig. 3 Left carotid (upper) and vertebral (lower) angiography. Left occipital avascular mass is identified.

4. 入院後経過

平成2年2月6日、急性水頭症に対して緊急に両側脳室ドレナージ術を施行。直後より意識状態はJ. C. S. で10~20で経過。脳室内血腫は徐々に減少し、脳室拡大も改善し、2月26日(Day 15)に脳室ドレナージを抜去。その後、徐々に水頭症の進行をみ、意識状態が低下し、

イソピスト CT システルノグラフィーにて髄液の循環障害が示唆されたため、3月6日に脳室-腹腔髄液短絡術が施行された。術後、意識状態は J. C. S. で 2 程度まで回復した。神経放射線学的所見より、多発性の cavernous angioma が疑われたため、出血源となった病巣の摘出と組織診断を目的として、先ず 4 月 26 日に It-occipital craniotomy により左後頭葉と側脳室内の病巣を摘出した。組織学的所見からは、典型的な cavernous angioma であった (Fig. 4)。第 1 回手術後、MRI にてさらに詳細に多発性病変の検索を行い、橋・左前頭葉・両側基底核部・右側脳室外側壁・両側頭頂葉等に T₂ 強調像において mixed intensity core の周りに low intensity の rim を呈する不整形の cavernous angioma と思われる 10 個以上の小病巣が認められた (Fig. 5)。6 月 14 日、It-fronto temporal craniotomy により左前頭葉の病巣を摘出し、本病巣も、cavernous angioma であることが確認された。術後経過は順調である。

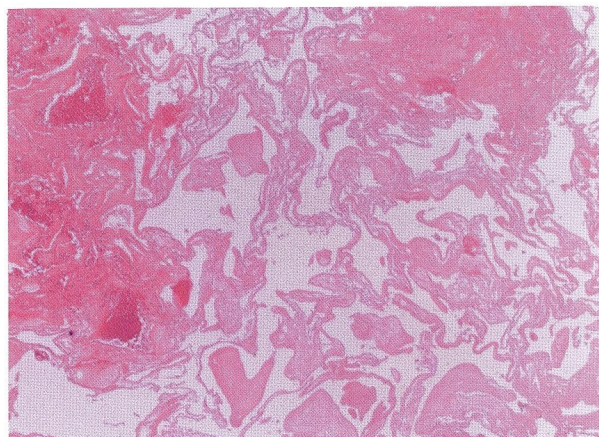


Fig. 4 Photomicrograph of the specimen of the left occipital lesion shows abnormal vessels which have a single layer of endothelium, with the thrombus. No brain tissue intervened.

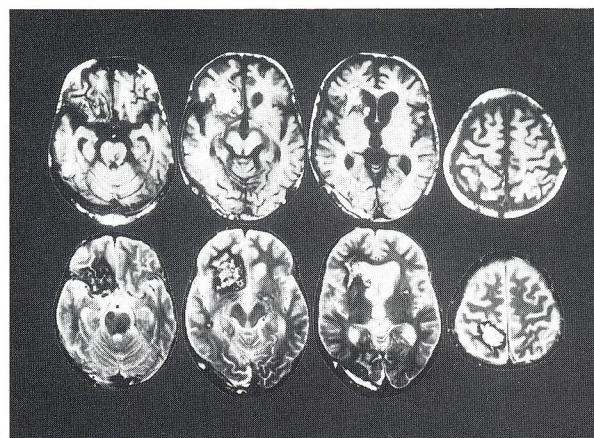


Fig. 5 MRI after removal of left occipital mass. T1 weighted image (upper) and T2 weighted image (lower). Multiple lesions with the sign of mixed intensity core with low intensity rim are disclosed in left frontal lobe, right basal ganglia, left parietal and brain stem.

3. 考 按

脳の血管奇形は、通常組織学的に i) capillary telangiectasis, ii) cavernous angioma, iii) arterio-venous malformation, iv) venous angioma の 4 種に分類され⁹⁾、cavernous angioma の発生について Cushing²⁾ は真の新生物としたが、Russel⁹⁾ は先天性の形成異常、即ち hamartoma の一つと考え、所¹³⁾ はその両者に介在するものとしている。Streeter¹⁰⁾ の脳血管発生説からは、cavernous angioma は第 2 期の錯誤形成により生じるとされており、この概念では多発性の cavernous angioma は原生血管網から、動脈・静脈・毛細血管に発達する間に複数箇所に錯誤形成が生じ、cavernous angioma の原基が多発すると考えられる。

cavernous angioma の多発頻度は過去の報告では様々であるが、Table 1 にまとめたごとく、少ないもので 12.5%、多いもので 50% となっている。特に Rigamonti⁷⁾ は摘出手術にて、cavernous angioma の確定診断を得た 10 例について全例に MRI を行い、5 例 (50%) に多発を認め計 27 個の病巣を検出し、cavernous angioma の診

Table 1 Multiplicity of Cavernous angioma

Rubinstein et al. ⁸⁾ (1972)	1 / 3
Voigt and Yasargil et al. ¹⁵⁾ (1976)	13.4%
Russel et al. ⁹⁾ (1977)	25%
Miyagi et al. ⁴⁾ (1987)	12.5% (pediatric cases)
Rigamonti et al. ⁷⁾ (1987)	50% (Diagnosed by MRI)

断における MRI の重要性を示唆している。

MRI は X 線 CT に比し、頭蓋による artifact が無い点、矢状断が容易に得られる点などから、特に後頭蓋窩、脳幹部病変の描出にすぐれていること、血腫内ヘモグロビンの Fe イオンの経時的变化による新旧血腫を区別して描出できることなどを特徴としている¹⁾⁶⁾¹¹⁾¹⁶⁾。cavernous angioma は後頭蓋窩、脳幹部にも比較的好発し、組織学的に新旧の血腫を混在することなどから、その診断に MRI が優れていることは明白である。従って MRI の普及が目ざましい現在、本例の如く症候性の病巣の他に多数の cavernous angioma を検出される症例はますます増加するものと考えられる。

cavernous angioma の MRI 所見は、特徴的に reticulated core with black rim と表現されているが、Rigamonti⁷⁾らは T₂強調画像における mixed intensity core は angioma 本体で、多様に拡張或いは血栓化した血管腔であり、周囲の low intensity band は、ヘモジデリンを貪食したマクロファージの沈着による gliosis の層であり、過去の繰り返す出血を示唆するものとしている。

この MRI 所見が示す如く cavernous angioma の周囲は gliosis やヘモジデリンを含んだ層により demarcate されていることが多く、血管腫そのものには神経組織は介在しないことから、cavernous angioma は慎重な手術操作によれば正常脳組織を損傷することなく摘出可能であると考えられる。このような考え方と、脳幹部 cavernous angioma の再出血が比較的高率で、予後も不良なものが多いことなどから、近年、脳幹部 cavernous angioma にも積極的に手術治療を考慮するという報告が相ついでいる³⁾⁶⁾¹⁴⁾。我々も、最近同部の cavernous angioma に手術摘出を行い良好な成績を得、報告しているが⁵⁾¹²⁾、この様な立場からも、MRI による後頭蓋窩、脳幹部病変の検索は重要な意味をもっているものと言える。

4. 結 語

MRI 上10個以上の多発性 cavernous angioma の1例を通して cavernous angioma の症例に対する MRI による後頭蓋窩、脳幹部病変の検索の重要性を報告した。

文 献

1) 安里令人, 伊藤春海, 藤沢一郎, 中野善久: 脳血管障

害 MR 画像診断の初期経験. 日独医報 30: 599-613, 1985

- 2) Curshing, H. & Bailey, P.: Tumors arising from blood-vessels of brain: Angiomatous malformations and hemangioblastomas. Springfield Ill, Charles C Thomas, 1928
- 3) 李 泰喜, 織田祥史, 滝 和郎, 山形 専, 和田英樹, 大塚俊之, 西村陽一, 松浦伸樹, 菊地晴彦: 脳幹部に発生した海綿状血管腫の3症例. 脳神経外科速報 Vol. 1 No. 1 39-42, 1990
- 4) 宮城航一, 六川二郎, 高良英一, 金城則雄: 乳児にみられた多発性海綿状血管腫の1例. 小児の脳神経 12(4): 279-282, 1987
- 5) 中川原讓二, 堀田隆史, 佐藤純人, 佐土根 朗, 鈴木知毅, 瀬尾善宣, 片岡丈人, 諫山幸弘, 中村順一, 末松克美: 橋背部海綿状血管腫の全摘出術. 第二十五回日本脳神経外科学会北海道地方会(抄録), 1990
- 6) 奥 達也, 米満 勤, 藤原 悟, 吉本高志, 鈴木二郎: 橋背部海綿状血管腫の1手術治験例. 脳神経外科15: 159-164, 1987
- 7) Rigamonti D, Drayer BP, Johnson PC, Hadley MN, Zabramski J, Spetzler RF: The MRI appearance of cavernous malformations (angiomas). J Neurosurg. 67: 518-524, 1987
- 8) Rubinstein I J: Tumors of Central Nerve System. Washington DC, Armed Forces Institute of Pathology, 1972, pp 400
- 9) Russel DS, Rubinstein I J: Pathology of Tumors of Nervous System, ed 4. Edward Arnold Ltd. London, 1977, pp 129-134
- 10) Streeter, G. L.: The development alternations in the vascular system of the brain of the human embryo. Contributions to Embryology: Carnegie Institute 271(8): 5-18, 1918
- 11) 高良英一, 六川二郎, 金城利彦, 銘苅 晋, 喜手苅勤: 出血をくり返した小脳海綿状血管腫の1小児例. 小児の脳神経 14: 39-43, 1989
- 12) 武田利兵衛, 堀田隆史, 島田 孝, 橋本郁郎, 川合 裕, 岡 亨治, 中村順一, 末松克美: 橋背部側部血管腫の1手術例. 第二十回日本脳神経外科学会北海道地方会(抄録), 1988
- 13) 所 安夫: 血管腫瘍と血管奇形, 脳腫瘍. 医学書院, 東京, 1959, pp371-395
- 14) 上出廷治, 野中 雅, 滝上真良, 藤重正人, 田辺純嘉, 端 和夫: 脳幹部海綿状血管腫-臨床徴候と手術適応-. 脳神経外科 19(1): 27-34, 1991
- 15) Voigt K, Yasargil MG: Cerebral cavernous haemangiomas or cavernomas. Neurochirurgia (stuttgart) 19: 59-68, 1976
- 16) 和賀志郎: 中枢神経系に海綿状血管腫. 脳神経外科 9(8): 881-895, 1981