

頭蓋骨海綿状血管腫の2例

徳植一樹、尾崎義丸、及川光照、佐藤憲市、瀬尾善宣、伊東民雄、中村博彦
中村記念病院 脳神経外科、財団法人北海道脳神経疾患研究所

Two Cases of Cavernoma Originated from the Skull

Kazuki TOKUUE, M.D., Yoshimaru OZAKI, M.D., Mitsuteru OIKAWA, M.D., Ken-ichi, SATOH, M.D., Yoshinobu SEO, M.D., Tamio ITO, M.D., and Hirohiko NAKAMURA, M.D.

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

Abstract:

Cavernoma has been known to be rare in the skull. We experienced two cases of cavernoma originated from the skull. Both cases were operated and pathologically made sure of cavernoma. In the radiological findings, bone-window CT revealed osteolytic lesion with dot-like high density areas. This finding was characteristic of the cavernoma in the skull.

Key words: skull tumor, cavernoma, surgery, computed tomography

緒言

海綿状血管腫は、不規則に拡張した洞状の血管が隣接して蜂窩巣状をなし、血管間に脳組織を含まないことを病理学的特徴とする¹⁾。全身の種々の部位に発生するが、骨発生の海綿状血管腫も知られ、骨腫瘍全体の0.7%と報告²⁾されている。骨発生海綿状血管腫の最も多い発生部位は椎体であり、頭蓋骨はそれに次ぎ、骨腫瘍全体の0.2%にすぎず³⁾ 稀な発生部位である。

我々は、自験2例の頭蓋骨発生の海綿状血管腫を経験したので、その画像所見の特徴を考察する。

症例

症例1

41歳、女性。

数年の経過で徐々に増大する右前額部腫瘍を主訴に外来受診した。表面平滑で硬く移動性はなく、骨性の隆起であった。意識清明であり、神経学的症候はなく、血液生化学的にも異常を認めなかった。頭部単純X線写真で

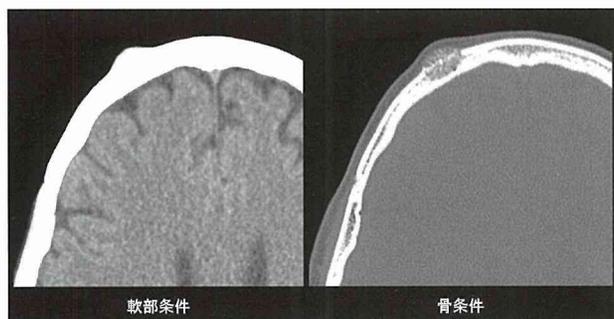


Fig. 1 症例1の単純CT
骨条件CTで右前頭骨の板間層から外板に径2.2 cmの腫瘍を認めた。

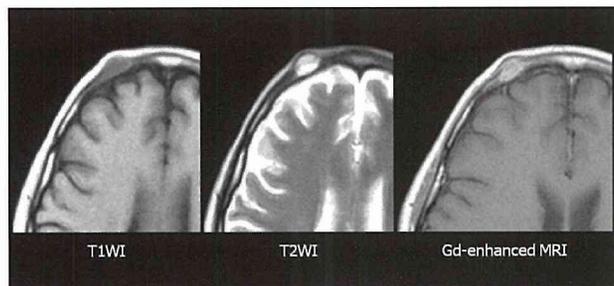


Fig. 2 症例1のMRI
T1WI : iso intensity
T2WI : high intensity
Gd-enhanced MRI: 内部が不均一に造影された。

は該当する右前頭骨に骨破壊性の病変を示した。単純CTでは、腫瘍は骨と同様のdensityを示し、外表面に突出するのみの非特異所見であった (Fig. 1左)。骨条件のCT (Fig. 1右) では、病巣は骨破壊性にlow densityを呈し、板間層から発生して外板方向に進展し、さらに骨吸収像の内部にはごく小さな点状のhigh density areaも混ざる所見が認められた。T1強調画像でiso intensity、T2強調画像でhigh intensityで、造影MRIでは内部が不均一に造影された (Fig. 2)。脳血管造影では右外頸動脈撮影も含め腫瘍陰影はみられず (Fig. 3左)、骨シンチ (^{99m}Tc MDP) では腫瘍に一致して集積像を認めた (Fig. 3右)。以上の放射線学的所見より、頭蓋骨発生の海綿状

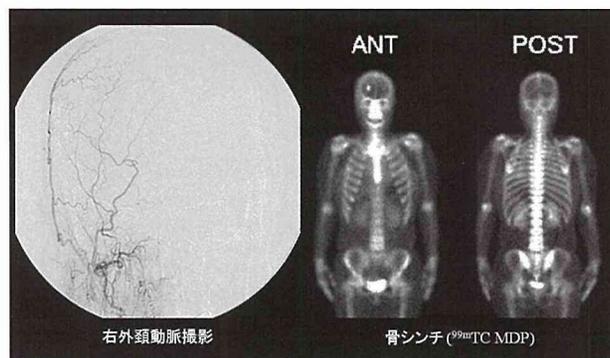


Fig. 3 症例1の右外頸動脈撮影：腫瘍陰影はみられない (左図)。
同例の骨シンチ (^{99m}Tc MDP) 像：腫瘍に一致する集積像を認めた (右図)。

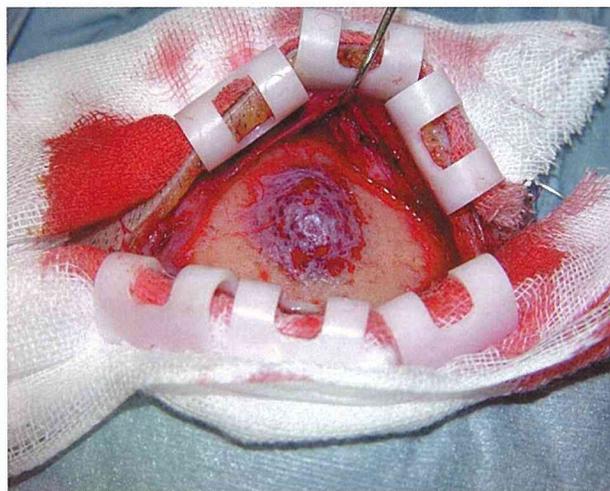


Fig. 4 症例1の手術所見
肥厚した骨梁に縁取りされた多数の小孔を認めた。Wheezingを伴い、血液が透見され青紫色を呈す。

血管腫を考えた。審美的および形成外科的理由により、全身麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。摘出腫瘍には肥厚した骨梁に縁取りされた多数の小孔を認め、wheezingを伴い、血液が透見され青紫色を呈した (Fig. 4)。病理所見では (Fig. 5)、一層の内皮と膠原線維からなる洞様の小血管が、神経組織を介在せずに隣接して増殖する所見で海綿状血管腫の像であった。

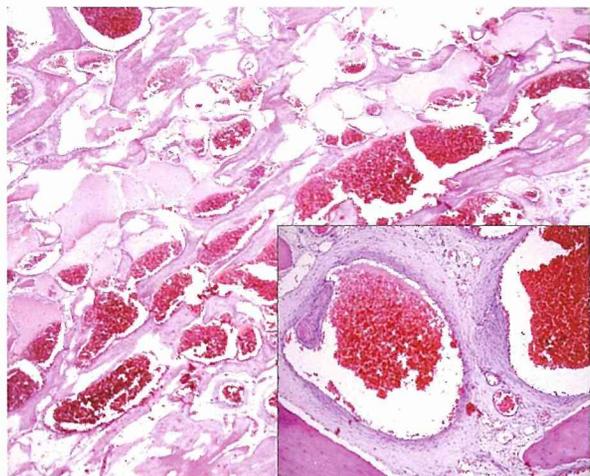


Fig. 5 症例1の病理所見
神経組織を介在せずに隣接して増殖する、一層の内皮と膠原線維からなる洞様の小血管を認めた。

症例 2

34歳、男性。

徐々に増大する左前額部腫瘍を自覚し、外来受診した。触診上、同部位の骨性の隆起であった。頭部単純X線写真では該当する右前頭骨に骨破壊性の病変を示した。単純CTではやはり外表面に突出するのみの非特異所見であった (Fig. 6左) が、骨条件のCT (Fig. 6右) で、腫瘍は骨破壊性にlow densityをなし、板間層から発生して外板、内板の両方向に進展し、さらに症例1と同様に骨吸収像の内部に点状のhigh density areaも混ざる所見が認められた。T1強調画像、T2強調画像、造影MRI所見 (Fig. 7)、脳血管造影所見 (Fig. 8左)、骨シンチ所見 (Fig. 8右) とともに症例1と同様の所見がみられた。以上の放射線学的所見より、症例2においても頭蓋骨発生の海綿状血管腫を考えた。審美的および形成外科的理由により、全身麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。手術所見 (Fig. 9)、病理所見 (Fig. 10) においても海綿状血管腫の所見であった。



Fig. 6 症例2の単純CT
骨条件CTで左前頭骨の腫瘍はlow densityの中に細かいhigh densityを伴う。

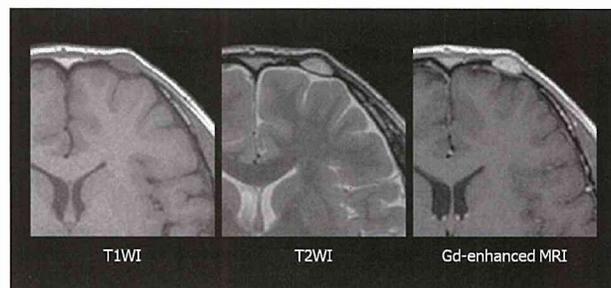


Fig. 7 症例2のMRI
T1WI : iso intensity
T2WI : high intensity
Gd-enhanced MRI : 内部が不均一に造影された。

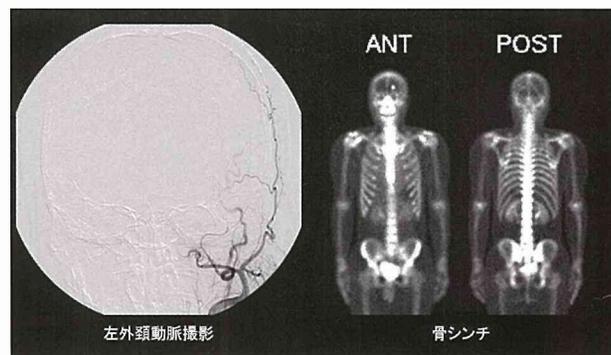


Fig. 8 症例2の左外頸動脈撮影：腫瘍陰影はみられない (左図)。
同例の骨シンチ (^{99m}Tc MDP) 像：腫瘍に一致する集積像を認めた (右図)。

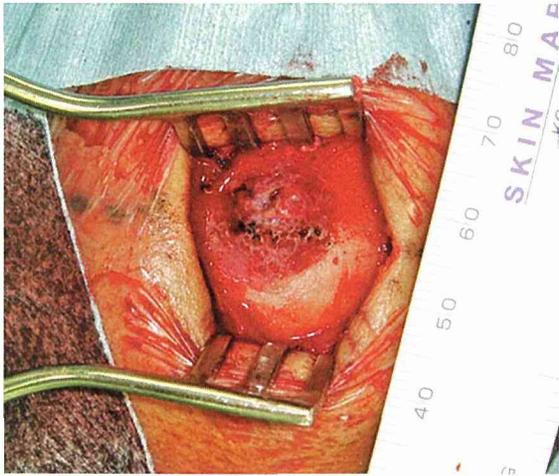


Fig. 9 症例2手術所見
多数の小孔を認めた。Wheezingを伴い、血液が透見され青紫色を呈す。

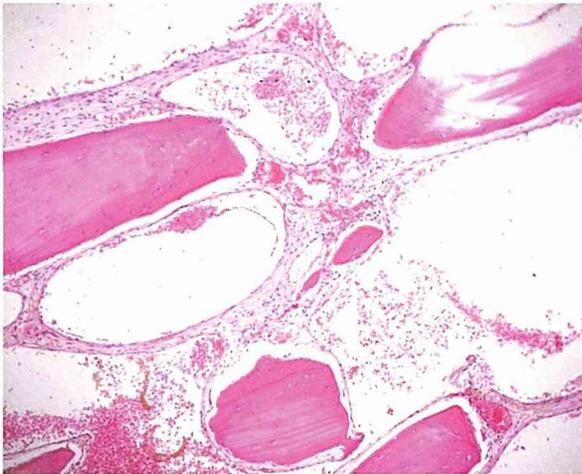


Fig. 10 症例1の病理所見
Cavernomaの像

考 察

我々の経験した骨海綿状血管腫は2例ともに前頭骨発生であったが、頭蓋骨海綿状血管腫の好発部位等について検討した。2002年のHecklらのreview⁴⁾では、1975年から2000年の25年間で125例の頭蓋骨海綿状血管腫の報告があり、Fig. 11に示すとおり、39例が前頭骨発生であり、およそ1/3を占めている。また、同reviewでは発生年齢については40代にそのpeakがあるとしている。我々の2例の頭蓋骨海綿状血管腫はこのreviewとほぼ合致しており典型例と考えられる。

今回経験した骨海綿状血管腫の手術所見および病理所

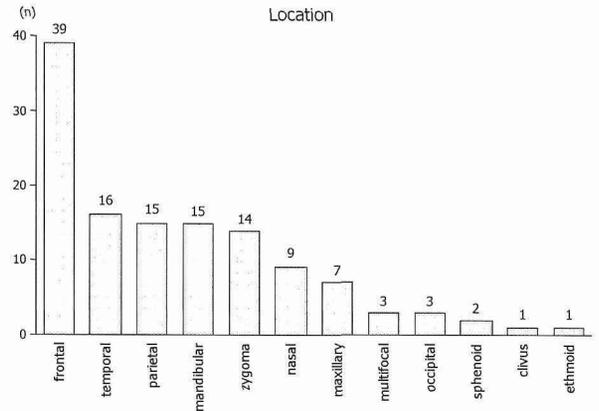


Fig. 11 頭蓋骨海綿状血管腫の好発部位 (文献4を改変)

見による診断は容易であった。手術所見では、肥厚した骨梁に縁取りされた多数の小孔を認め、wheezingを伴い、血液が透見され青紫色を呈し、一見して海綿状血管腫と判断でき、また、病理所見では、一層の内皮と膠原線維からなる洞様の小血管が神経組織を介在せずに隣接して増殖しており、他部位の海綿状血管腫と大差のないものであった。重要なことは、術前の画像所見でいかに海綿状血管腫と確診することができるかである。文献での所見に加えて、我々の2例においても骨条件CTにおける骨吸収像の内部に点状のhigh density areaも混ざる所見は、骨海綿状血管腫に特徴的な像といえる。2008年、Tharaらは椎骨海綿状血管腫の骨条件CTでの骨吸収像の中に肥厚した骨梁が点状にみられるこの所見を、布生地の水玉模様のpolka-dot patternに因んでpolka-dot signと命名した⁵⁾。この名称は未だ浸透しているとは言い難いものではあるが、特徴を的確に表現するとともに愉快的な名称である。骨腫瘍の鑑別の際に、polka-dot signが確認された場合には海綿状血管腫を考えるべきである。海綿状血管腫は、WHO 2007⁶⁾においては血管奇形の扱いであり、急速な増殖はないものと判断できる。したがって、報告例のように頭蓋冠の海綿状血管腫は美容形成の意味合いからも手術適応を考えるべきである。

結 語

自験2例の頭蓋骨海綿状血管腫を報告した。骨条件CTにおけるTharaらの命名したpolka-dot signは診断に有用であった。海綿状血管腫の手術適応は、美容形成的な意味合いも込めて考えるべきである。

文 献

- 1) Simard JM, Garcia-Bengochea F, Ballinger WE Jr, et al: Cavernous angioma: a review of 126 collected and 12 new clinical cases. *Neurosurgery*, 1986; 18: 162-172.
- 2) Banerji D, Inao S, Sugita K, et al: Primary intraosseous orbital hemangioma: a case report and review of the literature. *Rev Neurosurgery*, 1994; 35: 1131-1134.
- 3) Wyke BD: Primary hemangioma of skull. A rare cranial tumour. *AJR Am J Roentgenol*, 1946; 51: 302-316.
- 4) Heckl S, Aschoff A, Kunze S: Cavernoma of the skull: review of the literature 1975-2000. *Neurosurg Rev*, 2002; 25: 56-62.
- 5) Persaud T: The Polka-Dot sign. *Radiology*, 2008; 246: 980-981.
- 6) Puls W, Scheithauer BW, Perry A, et al: Mesenchymal, non-meningothelial tumours. In: David NL eds. *WHO Classification of Tumours of the Central Nervous System*. Lyon: IARC Press; 2007: p173-180.