

〈脳神経外科速報 vol.33 no.2 e20233302b, 2023〉

2年の経過で新規嚢胞が発生し加療した高齢者嚢胞性髄膜腫の1例

坂本量哉¹⁾, 山本真嗣¹⁾, 鈴木亮一¹⁾, 天野慎士¹⁾

1) 磐田市立総合病院脳神経外科 〒438-8550 静岡県磐田市大久保 512-3

Key Slide

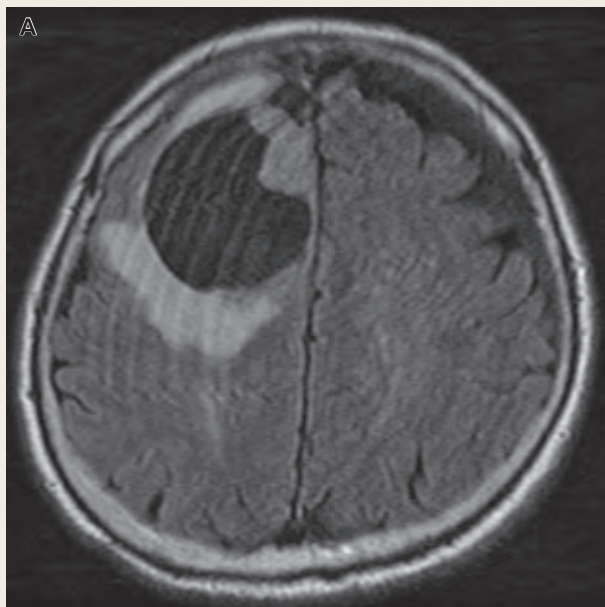


Fig.2 MRI, on admission

A : FLAIR image showed a cyst 6 cm in diameter in or adjacent to the tumor. Parenchymal edema was observed around the cyst.

Cystic meningioma surgically treated for a new cyst that developed after 2-years of follow-up in an elderly patient: A case report

Tomoya SAKAMOTO¹⁾, Shinji YAMAMOTO¹⁾, Ryoichi SUZUKI¹⁾, Shinji AMANO¹⁾

¹⁾ Department of Neurosurgery, Iwata City Hospital

Introduction: Cystic meningiomas are relatively rare among meningiomas, which are common primary brain tumors. Only a few cases of cystic meningiomas in the elderly in their eighties can be found in the literature. Herein, we report a case of cystic meningioma, which was surgically treated because a new cyst developed after 2-years of follow-up in an elderly patient.

Case: The 89-year-old man arrived in our hospital with status epilepticus. CT and MRI images showed a 6 cm diameter cyst adjacent to a solid mass 2 cm in diameter. The same solid lesion had been radiologically diagnosed 3 years previously as falx meningioma. We managed the seizure with levetiracetam. Since the tumor exerted a mass effect on the brain parenchyma, we removed the tumor surgically under general anesthesia. Intraoperative findings showed that the cyst contained xanthochromic and protein-rich fluid. The solid tumor attached to the falx was resected through the space of the cyst. Pathological diagnosis was transitional meningioma, WHO grade 1. Post-surgical course was uneventful.

Discussion: Cystic meningioma accounts for approximately 1-10% of meningiomas, and it is classified according to the relative position of the cyst to the tumor. Several processes of cyst formation, such as intratumoral hemorrhage, necrosis, degeneration, secretion, edema, gliosis, and cerebrospinal fluid trapping have been proposed. In this case, it was unclear whether the cyst was intratumoral or extratumoral. This case is of interest because only the cyst enlarged while the solid tumor did not. We generally manage small brain tumors conservatively in the elderly. However, a small subset of those tumors have to be surgically resected because they undergo dramatic changes as in this case.

Conclusion: Follow-up of meningioma is meaningful even in elderly patients with small tumors.

Key Words : cystic meningioma, elderly

(Received March 3, 2022; Accepted June 22, 2022)

Correspondence to Tomoya SAKAMOTO, M.D.,
Department of Neurosurgery, Hamamatsu University School
of Medicine, 1-20-1 Handayama, Higashi-Ku, Hamamatsu-
Shi, Shizuoka, 431-3192, Japan
E-mail: tomoya.sakamoto.med[at]gmail.com

I. 緒言

髄膜腫は原発性脳腫瘍の中でも日常で遭遇する頻度の高い腫瘍の1つである。しかし嚢胞形成を伴う髄膜腫、いわゆる嚢胞性髄膜腫は、めずらしい病態である。今回我々は、2年間という比較的短期間において新規に嚢胞を形成し有症状となったため手術加療を行った、80歳代後半の高齢者嚢胞性髄膜腫の症例を経験した。高齢者の脳腫瘍をフォローアップする意義を感じる症例であり、文献的考察を交えて報告する。

II. 症例

症例：89歳男性。

既往歴：前立腺がん。

併存症：腰部脊柱管狭窄症、不眠症。

現病歴：3年前に偶発的にMRI画像で脳腫瘍を指摘された。約2cm径の大脳鎌髄膜腫を疑う腫瘍性病変であり、当科外来で経過観察となった。翌年のフォローアップで腫瘍性病変の大きさおよび周囲状態に変化は認めなかった。以後は患者の希望に沿って終診となっていた。

約2年後の入院1週間前より、間欠的な左顔面痙攣が家人により確認されていたが、受診には至らなかった。入院同日に全身痙攣を発症したため、当院へ救急搬送された。搬送時は全身強直間代性痙攣を認めていたが、diazepam 10mgの静脈内投与とfosphenytoin 750mgの点滴投与にて頓挫した。頭部CT画像で右前頭葉に径6cm程度の嚢胞性病変を認め、当科紹介となった。

入院時現症：E3V4M6, 左片麻痺 MMT 1/5。

MRI所見：Fig. 1, 2に示す。Fig. 1は初診時(3年前)、Fig. 2は入院時の画像である。

1AはFLAIR画像の軸位断面であり、大脳鎌に付着する径2cm程度の高信号腫瘍性病変を認める。周囲に浮腫は見られない。**1B, C**はそれぞれ造影T1強調画像の軸位断面と冠状断面であるが、腫瘍性病変は均一に造影効果を示している。また**1C**ではdural tail sign(矢印)が確認でき、髄膜腫を疑う所見である。

2AはFLAIR画像の軸位断面であり、**1A**と比較して新規に6cm径の低信号嚢胞性病変が確認できる。周囲の脳実質に浮腫を認める。**2B, C**はそれぞれ造影T1強調画像の軸位断面と冠状断面であるが、腫瘍性病変の造影効果は変わらず均一であり、また、**1B, C**と比較して内部に明らかな変化を認めない。

また、嚢胞内容はDWI/T1WI/FLAIRで低信号、T2WI/T2*WIで高信号を呈し、

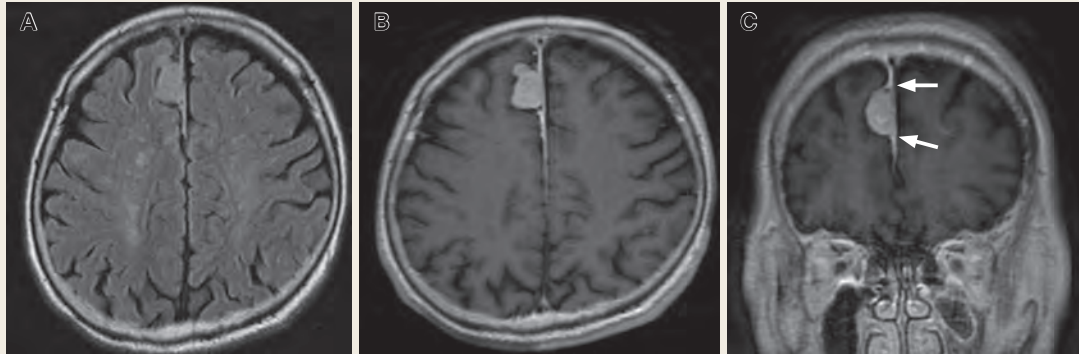


Fig.1 Magnetic Resonance Imaging (MRI) 3 years ago

- A** : Fluid-attenuated inversion recovery (FLAIR) image showed a homogenous tumor 2 cm in diameter attached to the falx, and there was no edematous change around the tumor (axial image).
B : Gadolinium (Gd) -enhanced T1 weighted Imaging (T1WI axial image) showed a homogeneously enhanced tumor.
C : Gd-enhanced T1WI (coronal image) showed the dural tail sign (white arrow).

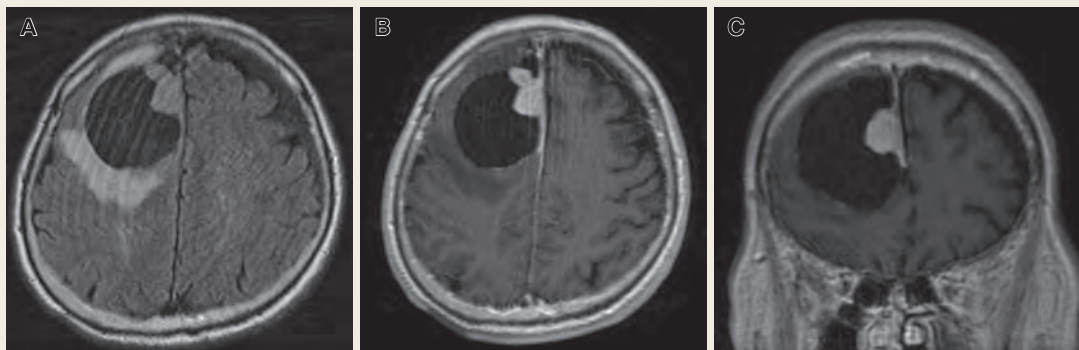


Fig.2 MRI, on admission

- A** : FLAIR image showed a cyst 6 cm in diameter in or adjacent to the tumor. Parenchymal edema was observed around the cyst.
B : Gd-enhanced T1WI (axial image) showed a homogeneously enhanced tumor.
C : Gd-enhanced T1WI (coronal image) showed no obvious enhancement of the cyst wall.

髄液成分が主体と考えられる所見であった。嚢胞壁ははっきりとせず、その造影効果は明らかには認められなかった。腫瘍と嚢胞の位置関係に関しては、腫瘍外に嚢胞が存在するようにも、嚢胞に腫瘍が包含されるようにも見えた。

CT 所見 : Fig. 3 に示す。腫瘍は全体として均一な等吸収域から高吸収域を示し、石灰化や出血性変化は認めなかった。嚢胞は低吸収域を示し、髄液とほぼ同等であった。周囲の骨破壊や骨形成を認めなかった。また、CTA 上は明らかな異常血管を認めなかった。

入院後経過 : Levetiracetam 1,000 mg/day の投与で痙攣発作の再発なく経過した。入院時に存在した左片麻痺は改善傾向ではあったが完全回復には至らず、嚢胞によ



Fig.3

In the CT image, iso-to-high density in the solid component and low density in the cystic component of the tumor can be observed. There was no evidence of calcification or hemorrhage.

る圧迫の影響があると思われた。意識状態は入院時と変わらず、E3V4M6程度で推移した。また、入院後に誤嚥性肺炎（Methicillin-resistant *Staphylococci*）を発症したが、meropenem 3 g/dayの投与にて軽快した。

89歳と非常に高齢ではあったが、減圧および摘出を目的として開頭術を施行した。

手術所見：全身麻酔下で開頭腫瘍摘出術を施行した。骨、硬膜、脳表に異常所見は認められなかった。

嚢胞直上の皮質に2 cmの皮質切開をおきDandy針で嚢胞腔を穿刺し吸引すると、キサントクロミーの液体を確認した。嚢胞腔内で正中方向に視野を移すと、大脳鎌に付着する白色調双頭状の腫瘍を確認した。弾性硬であった。嚢胞腔との間を隔てる構造物は確認できなかった。外観的には髄膜腫と矛盾しない所見であった。大脳鎌への付着部を

凝固止血しつつ腫瘍を大脳鎌から剥離し一塊で摘出した。嚢胞腔内を観察すると、膜に覆われた脳組織を確認した。くも膜のみなのか、ないしは嚢胞壁を伴ったくも膜なのかは判断することができなかった。膜の摘出は行わなかった。

病理所見：嚢胞内容液の病理細胞診では血液成分以外の細胞成分は認めなかった。タンパク濃度は588 mg/dLと非常に高かった。

Fig. 4に腫瘍の病理組織像を示す。**4A**は腫瘍断面のマクロ像である。全体に白色調である。**4B, C**は腫瘍断面のミクロ像である。Meningothelial meningiomaとfibrous meningiomaが混在した像であり、transitional meningiomaの診断となった。またMIB-1標識率は1%であり、WHO grade 1であった。腫瘍には明らかな炎症

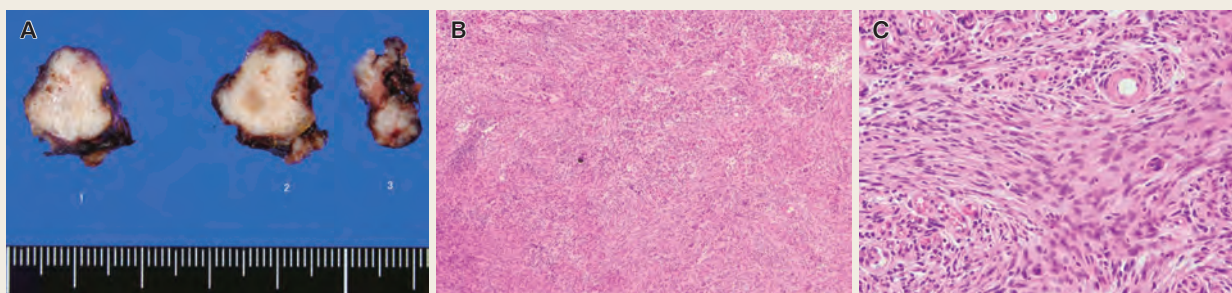


Fig.4

A : Macroscopic specimen showed a whitish, solid tumor 2 cm in diameter.

B, C : Hematoxylin and eosin (HE) staining showed meningotheelial and fibrous meningioma (transitional meningioma) . Cells were homogenous with no nuclear atypia. (**B :** × 4, **C :** × 20)

性変化や出血性変化を認めなかった。

術後経過：術後は合併症なく経過した。Levetiracetam 1,000 mg を継続し，痙攣発作なく経過した。左片麻痺は術後経過の中でMMT 4 + /5 まで改善を認めた。覚醒状態はE4V5M6 となり手術前と比較して改善した。入院中に明らかな再発はなく，リハビリテーション病院へ転院とした。

III. 考 察

嚢胞性髄膜腫の頻度は1～10%と報告により様々であるが，5%前後との報告が多い¹⁻⁸⁾。発生部位は前頭葉および頭頂葉に面した円蓋部が最多で，大脳鎌部が続く^{1, 3)}。組織型ではmeningothelial meningioma が最多で，35%程度を占めるとされる^{3, 6)}。40歳代から50歳代での報告が多い⁸⁾。

嚢胞性髄膜腫においては，嚢胞が腫瘍内にあるか腫瘍外にあるかによる分類がなされている。Nautaらの分類が代表的であり，以下に列挙する¹⁾。

- ・Type 1 : Centrally located intratumoral cyst (腫瘍中心部に存在)
- ・Type 2 : Peripherally located intratumoral cyst (腫瘍内辺縁部に存在)
- ・Type 3 : Peritumoral cyst in the adjacent parenchyma (腫瘍外で脳実質内に存在)
- ・Type 4 : Peritumoral cyst between the tumor and the adjacent parenchyma (腫瘍と脳実質との間に存在)

Type ごとの嚢胞増大や術後再発のリスクに関しては，渉猟し得た限りまとまった報告はない。ただしType 1/2 は腫瘍内嚢胞，Type 3/4 は腫瘍外嚢胞と位置付けられるため，嚢胞形成の原因や嚢胞壁摘出の要否に関しては以下に示すように考えられる。

嚢胞形成の原因に関しては様々な機序が推定されている。特に腫瘍内嚢胞 (Type 1/2) か腫瘍外嚢胞 (Type 3/4) かで主な原因が異なる。腫瘍内嚢胞であれば腫瘍内出血，壊死，粘液変性，空胞変性が主体であり，腫瘍外嚢胞であれば腫瘍細胞からの分泌，腫瘍周囲の浮腫やグリオーシス，腫瘍の圧迫による髄液のトラッピングが主体であるとされる^{1-3, 6, 9)}。

摘出に際しては嚢胞壁の切除に関して複数の報告で検討されている^{3, 5, 9-14)}。嚢胞壁も含めて摘出するのがよいとする報告がある^{9, 10)}。一方で，造影されない嚢胞壁は摘出の必要性が低いとする報告もある¹⁴⁾。ただし，造影されない嚢胞壁から腫瘍細胞が検出されたという報告や³⁾，逆に造影された嚢胞壁であっても腫瘍細胞が検出されなかったという報告もあり³⁾，術前の造影MRI画像のみで嚢胞壁の切除を検討することはできないと考えられる。以上をNautaらの分類にあてはめた

報告もある³⁾。すなわち、Type 1/2では嚢胞壁は腫瘍細胞と考えられるため摘出すべきであり、Type 3/4では嚢胞壁は腫瘍細胞で構成されていない可能性が高く、積極的に摘出しなくともよいが、Type 3/4でも嚢胞壁から腫瘍細胞が検出されることもあり一概にはいえない、という検討である³⁾。

本症例に関しては、術前画像では前述の Nauta らの分類でいうところの Type 4、ないしは非常に薄い嚢胞壁を伴った Type 2 の嚢胞性髄膜腫が考えられた。術中所見では、嚢胞内容液はキサントクロミーかつタンパク濃度の高い成分であり、出血成分と思われた。腫瘍内出血の痕跡と考えられ、Type 2 の特徴に矛盾はなかった。ただし充実性腫瘍の形態が経年的にほぼ変化せず、病理組織所見で明らかな出血性変化が見られなかった点は、腫瘍内出血の発生とは矛盾する印象があった。また、Type 4 ではあるが嚢胞内部に出血成分を含んだものであった可能性も否定はできない。その場合には、何らかの原因でくも膜の微細な血管が破綻した可能性や、腫瘍表面からの少量の出血や分泌があった可能性が考えられる。術前の造影 MRI 画像では嚢胞壁の造影効果は明らかでなく、術中も嚢胞壁は明らかでなかったため、摘出には至らなかった。本症例の Type を決定することは困難であり、嚢胞形成の原因を確定することはできなかった。嚢胞形成過程に関しては今後のさらなる症例の蓄積および検討が必要である。

嚢胞性髄膜腫の鑑別診断としては、血管芽腫、転移性脳腫瘍、神経膠腫などが挙げられる^{3, 6)}。術前画像では鑑別が困難な症例も存在する。本症例では当初血管芽腫の可能性も考えていたが、経年的な画像変化を鑑みて嚢胞性髄膜腫の可能性を考えた。嚢胞性髄膜腫は日常診療で経験することの少ない病態であるが、嚢胞性腫瘍の鑑別疾患に含めるべきである。

外来診療において、小さく、無症候性で、かつ良性と思われる腫瘍性病変は経過観察とすることが多い。特に80歳代後半においてはほとんどが経過観察となるであろう。これまで報告されてきた嚢胞性髄膜腫の症例は、発見時から存在する嚢胞性病変が増大したものや、明らかな腫瘍内出血の経過を示したものに限られていた。本症例は80歳代後半に偶発的に発見された充実性成分のみの小さな脳鎌髄膜腫であり、その病変自体には明らかな変化を来さずに新規に巨大嚢胞を伴って発症した点で過去の報告とは異なる。現代の高齢化社会においては今後もこのような症例が増加する可能性があり、高齢者の継続的なフォローアップが治療につながる場合もあることを念頭におく必要がある。

IV. 結 語

2年の経過で新規嚢胞が発生し手術加療に至った高齢者嚢胞性髄膜腫の症例を経験した。高齢者の無症候性良性腫瘍は基本的には経過観察とすることが多い。しかしながら本症例のように経過中に劇的な変化を起し、かつ治療に結びつくような例も存在する。さらなる高齢化社会に進むにつれ手術適応がより高齢者へ拡大されることが想定される中で、我々治療者のみならず患者に対しても経過観察の重要性を認識させる必要がある。

本論文の要旨は第101回日本脳神経外科学会中部支部学術集会（2022年4月9日，富山）で発表した。

文献

- 1) Amin OS, et al: Cystic meningioma. *BMJ Case Rep*: bcr2014207690, 2015
- 2) 若本寛起 ほか：経過中に腫瘍内出血を来した嚢胞性髄膜腫の1例. *Neurological Surgery 脳神経外科* 26:247-52, 1998
- 3) Wang P, et al: Peritumoral cystic meningioma: A report of two cases and review of the literature. *Exp Ther Med* 11: 904-8, 2016
- 4) Tamada T, et al: Meningioma mimicking an intraparenchymal cystic tumor. *Nagoya J Med Sci* 80: 431-4, 2018
- 5) Ramanathan N, et al: Cystic Meningioma Masquerading as a Metastatic Tumor: A Case Report. *Malays J Med Sci* 23: 92-4, 2016
- 6) Go KO, et al: Cystic Meningiomas: Correlation between Radiologic and Histopathologic Features. *Brain Tumor Res Treat* 6: 13-21, 2018
- 7) Weber J, et al: Intraoperative management of cystic meningiomas. *Neurosurg Rev* 26: 62-6, 2003
- 8) Sridhar K, et al: Cystic meningiomas. *Surg Neurol* 43: 235-9, 1995
- 9) Docampo J, et al: Cystic meningioma simulating arachnoid cyst: report of an unusual case. *Case Rep Radiol*: 371969, 2014
- 10) Inoue T, et al: Recurrent cystic meningioma. *Surg Neurol* 26: 399-404, 1986
- 11) Carrasco Moro R, et al: Cystic meningiomas: Radiological and pathological correlation with surgical implications. *Neurocirugia (Astur : Engl Ed)* 30: 1-10, 2019
- 12) Worthington C, et al: Meningioma cysts. *Neurology* 35: 1720-4, 1985
- 13) Weber J, et al: Intraoperative management of cystic meningiomas. *Neurosurg Rev* 26: 62-6, 2003
- 14) Wasenko JJ, et al: Cystic meningiomas: MR characteristics and surgical correlations. *AJNR Am J Neuroradiol* 15: 1959-65, 1994