

〈脳神経外科速報 vol.33 no.3 e20233303d, 2023〉

比較的短期間で発生・増大した側脳室髄膜腫の1例

山下壮二郎¹⁾, 松尾諭¹⁾, 米田玲子²⁾, 松角宏一郎¹⁾

1) 国家公務員共済組合連合会浜の町病院脳神経外科 〒810-0072 福岡県福岡市中央区長浜 3-3-1

2) 国家公務員共済組合連合会浜の町病院病理診断科

Key Slide

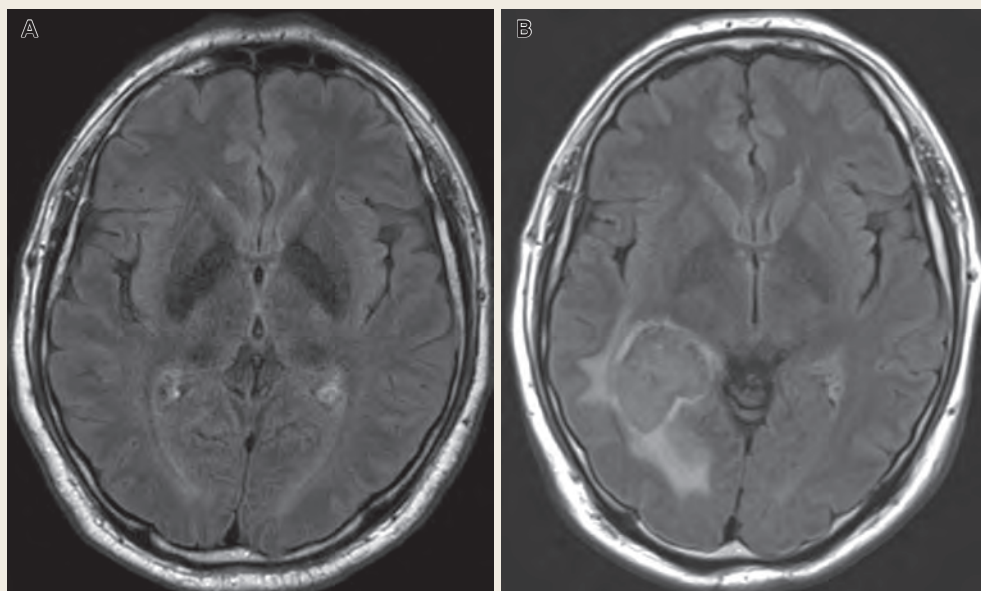


Fig.1 Preoperative images

A : An axial fluid-attenuated inversion recovery (FLAIR) image of one and half years before admission showed no mass lesion.

B : An axial FLAIR image on admission showed homogeneous iso intensity mass lesion accompanied with peritumoral edema in the right trigone.

An unusual rapid growth of an intraventricular meningioma: a case report

Sojiro YAMASHITA ¹⁾, Satoshi MATSUO ¹⁾, Reiko YONEDA ²⁾, Koichiro MATSUKADO ¹⁾

1) Department of Neurosurgery, Hamanomachi Hospital

2) Department of Pathology, Hamanomachi Hospital

We report a case of a histologically benign intraventricular meningioma in a 43-year-old male whose magnetic resonance imaging (MRI) performed one and a half years before surgical operation did not reveal any intracranial mass lesion. He had been undergoing regular head MRI as part of follow-up after a medullary infarction until 18 months prior to his visit, and there were no intracranial mass lesions. Head MRI done for investigating the cause of the headache revealed a homogeneously contrast-enhanced mass occupying the trigone of the right lateral ventricle with maximum diameter of 35 mm and peritumoral edema. Although a lateral ventricular meningioma was the most likely diagnosis, a malignant tumor could not be

ruled out. The tumor was totally resected (Simpson's grade I). The histological examination showed a transitional meningioma with two atypical features and a MIB-1 index of 11.9%. This case suggests that even if there were no abnormal findings on head imaging approximately six months to several years previously, the possibility of meningioma cannot be completely ruled out.

Key Words : meningioma, intraventricular meningioma, rapid growth

(Received August 2, 2022; Accepted January 12, 2023)

Correspondence to Sojiro YAMASHITA, M.D.,

Department of Neurosurgery, Hamanomachi Hospital, 3-3-1

Nagahama, Chuo-ku, Fukuoka-shi, Fukuoka, 810-0072, Japan

E-mail: sohjy0703 [at] icloud.com

I. 緒言

悪性脳腫瘍と比較し、良性脳腫瘍は一般的に緩徐に増大するため、症候を呈するまでには比較的長期間を要する。代表的な良性腫瘍の1つである髄膜腫は、時に腫瘍内出血や嚢胞性変化を伴って比較的短時間で腫瘍容積が増大し症候性を呈することがあるが^{1, 2)}、画像上、異常のない状態から腫瘍本体が急速に増大する症例は極めて稀であり、症例報告が散見される程度である³⁻⁵⁾。今回我々は、約1年半の間に発生・増大した側脳室髄膜腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

II. 症例

患者：43歳男性。

主訴：頭痛。

現病歴：来院2年前に右後下小脳動脈解離に伴う延髄梗塞の既往があり、定期的に外来で画像検査をされていた。転居に伴い、来院1年半前で定期的な外来受診が途絶えていたが、経過中に頭部MRIで明らかな腫瘍性病変は指摘されていなかった(Fig. 1A)。来院1カ月前からの頭痛の精査目的に施行したMRIで右側脳室三角部に腫瘍性病変を認めた(Fig. 1B)。腫瘍は右側脳室三角部を占拠しており、発生してから短時間で増大し、周囲に浮腫性変化を伴っていたことから手術適応があると判断し、手術加療目的で当科入院とした。

既往歴：右後下小脳動脈解離、延髄梗塞。

家族歴：特記事項なし。

神経学的所見：意識清明。視野欠損は認めず、その他脳神経系に異常は認めなかった。

放射線学的所見：頭部MRIで右側脳室三角部にT1低信号、T2等信号を呈する腫瘍性病変を認め、腫瘍の形状は不整であり、周囲に浮腫性変化を伴っていた(Fig. 1B)。腫瘍に石灰化は認めなかった(Fig. 1C)。腫瘍は造影剤で均一に増強され、最大径は35mmと大きく、三角部を占拠していたが脳室拡大は認めなかった(Fig. 1D~F)。腫瘍前方には強く増強される索状物を認め、外側後脈絡叢動脈からのfeederと考えられた(Fig. 1D)。なお、来院1年半前に椎骨動脈解離による右延髄梗塞の経過観察目的に撮像した頭部MRIでは同部位に腫瘍性病変は認めなかった(Fig. 1A)。

治療方針：画像所見から髄膜腫を最も疑った。しかしながら、約1年半で腫瘍が発生しており、腫瘍の増大速度から悪性腫瘍の可能性も否定できなかった。症候性であり、診断確定目的で開頭腫瘍摘出術を行う方針とした。腫瘍への距離が近く、feederの処理がしやすい、側頭葉経由でアプローチすることとした。

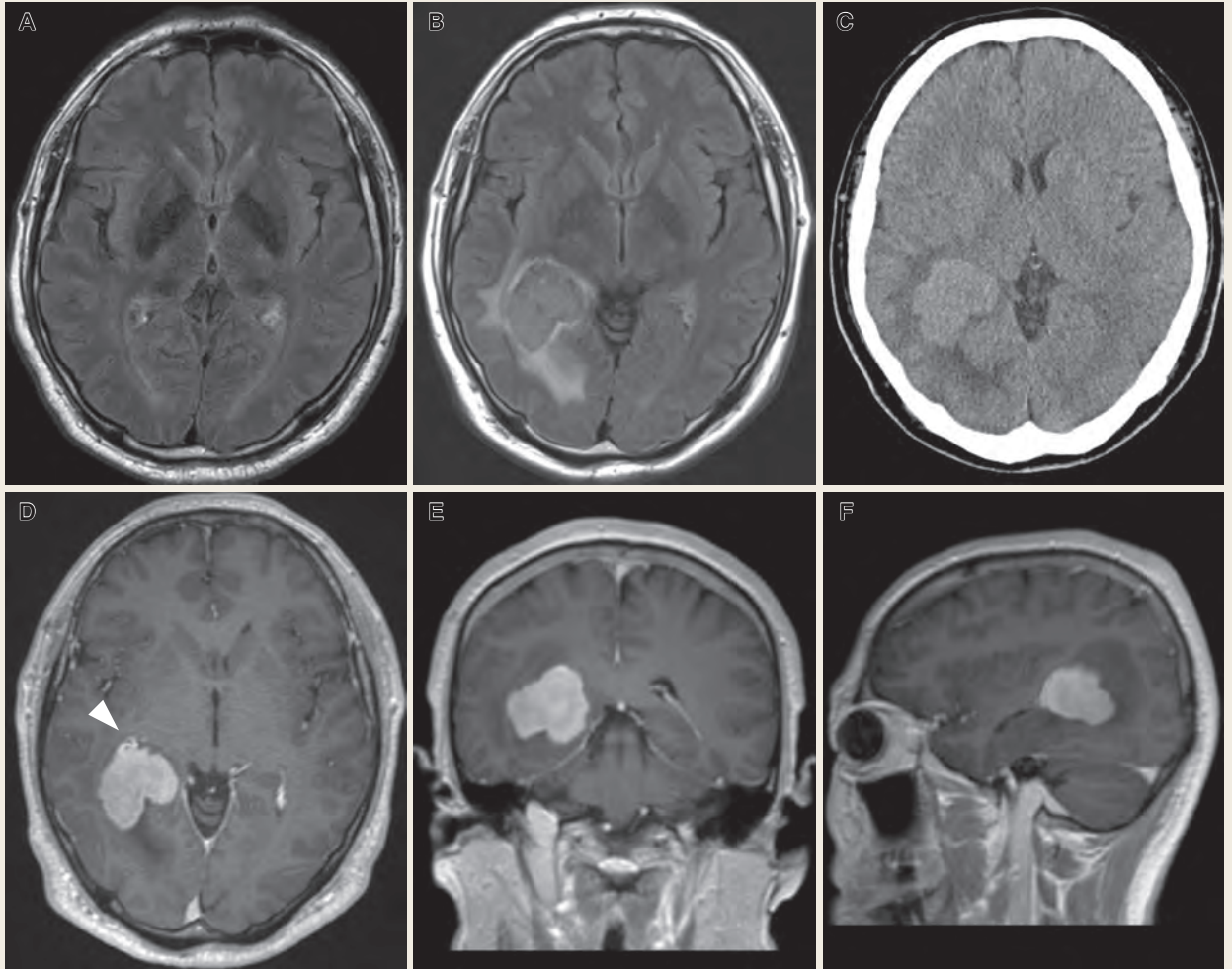


Fig. 1 Preoperative images

- A : An axial fluid-attenuated inversion recovery (FLAIR) image of one and half years before admission showed no mass lesion.
 B : An axial FLAIR image on admission showed homogeneous iso intensity mass lesion accompanied with peritumoral edema in the right trigone.
 C : An axial computed tomography (CT) showed no calcification in the mass lesion.
 D-F : Gadolinium enhancement axial (D), coronal (E), and sagittal (F) T1-weighted images.
 In the axial image (D), enhanced cord like structure adherent to the anterior part of the tumor indicated feeding artery (white arrow head) from the lateral posterior choroidal artery.

手術所見：ナビゲーション支援下で手術を行った。右側頭開頭を行い、ナビゲーションおよび術中エコーを用い、腫瘍の局在を確認した。中側頭回の脳溝を分け、腫瘍に到達した。周囲の脳組織に対して愛護的に操作するべく、チューブリトラクターを用いて術野を確保した (Fig. 2A)。腫瘍は淡赤色調で硬く、典型的な髄膜腫の所見であり、迅速検査でも髄膜腫の診断であった。腫瘍表面を丹念に凝固し、内減圧を行った。腫瘍からの出血はほとんど認めなかった。腫瘍の可動性をもたせ、周

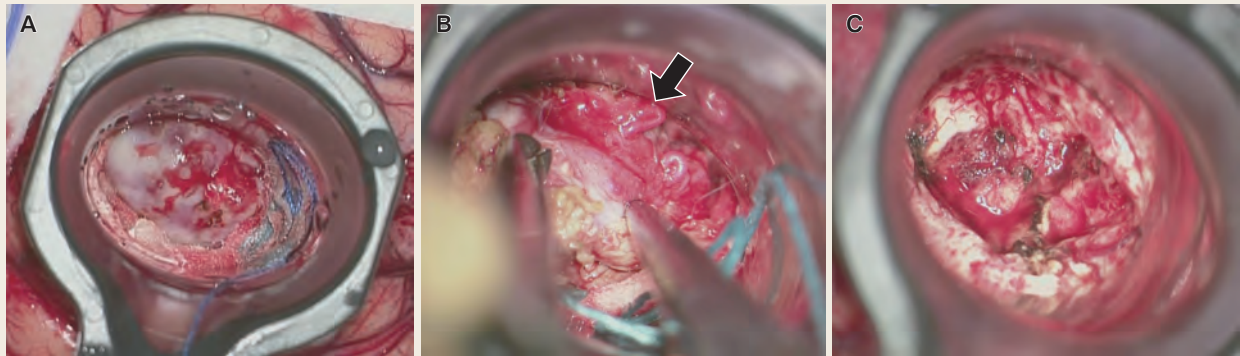


Fig. 2 Intraoperative photographs

A : The tumor was exposed through the tubular retractor.

B : The dilated vessels attached to the surface of the tumor seemed to be feeders from lateral posterior choroidal artery.

C : The tumor was totally resected.

囲から剥離した。腫瘍と脳室壁との癒着はほとんどなく、腫瘍底面より腫瘍を栄養する、内側および外側の後脈絡叢動脈と思われる動脈構造を確認した (Fig. 2B)。これら进行处理し、Simpson grade 1 の摘出を行った (Fig. 2C)。

病理組織学的所見：HE 染色では弱拡大像で壊死像は認めず (Fig. 3A)、強拡大像で卵円形の核をもつ紡錘形細胞が束状に配列し、渦巻き状増生を示す部分も認めた (Fig. 3B)。シート状に配列し、比較的 N/C 比の高い腫瘍細胞が認められたが、明瞭な核小体や地図状の壊死は認められず、核分裂像も指摘できなかった (Fig. 3C)。以上から Transitional meningioma, World Health Organization (WHO) grade I と診断した。MIB-1 index は 11.9% と高値であった (Fig. 3D)。

術後経過：術後の造影 MRI で、腫瘍は全摘出できていた (Fig. 4A ~ C)。術前に認めていた頭痛は改善した。術後一過性の左下 1/4 盲を認めたが、術後 3 カ月の時点で消失していた。

III. 考 察

髄膜腫の発生の危険因子として、電離放射線、遺伝的素因、性ホルモンなどが報告されている^{6,8)}。放射線治療後の髄膜腫発生に関しては古くから報告されており、平均 1.5Gy の放射線治療で髄膜腫発生の相対危険度が 9.5 倍に上昇したと報告されている⁶⁾。遺伝的素因の関連も示唆されており、1 親等以内の頭蓋内髄膜腫の既往は相対危険度が 4.4 倍になるという報告もある⁷⁾。性ホルモンの関与に関しては、アンドロゲン拮抗薬 (cyproterone) の長期使用者で、髄膜腫の発生頻度が 11 倍に増加するという報告や⁸⁾、前立腺がんに対して Luteinizing Hormone-Releasing Hormone (LH-RH) agonist 投与中に髄膜腫が新規発生した症例が報告されている⁴⁾。その他、

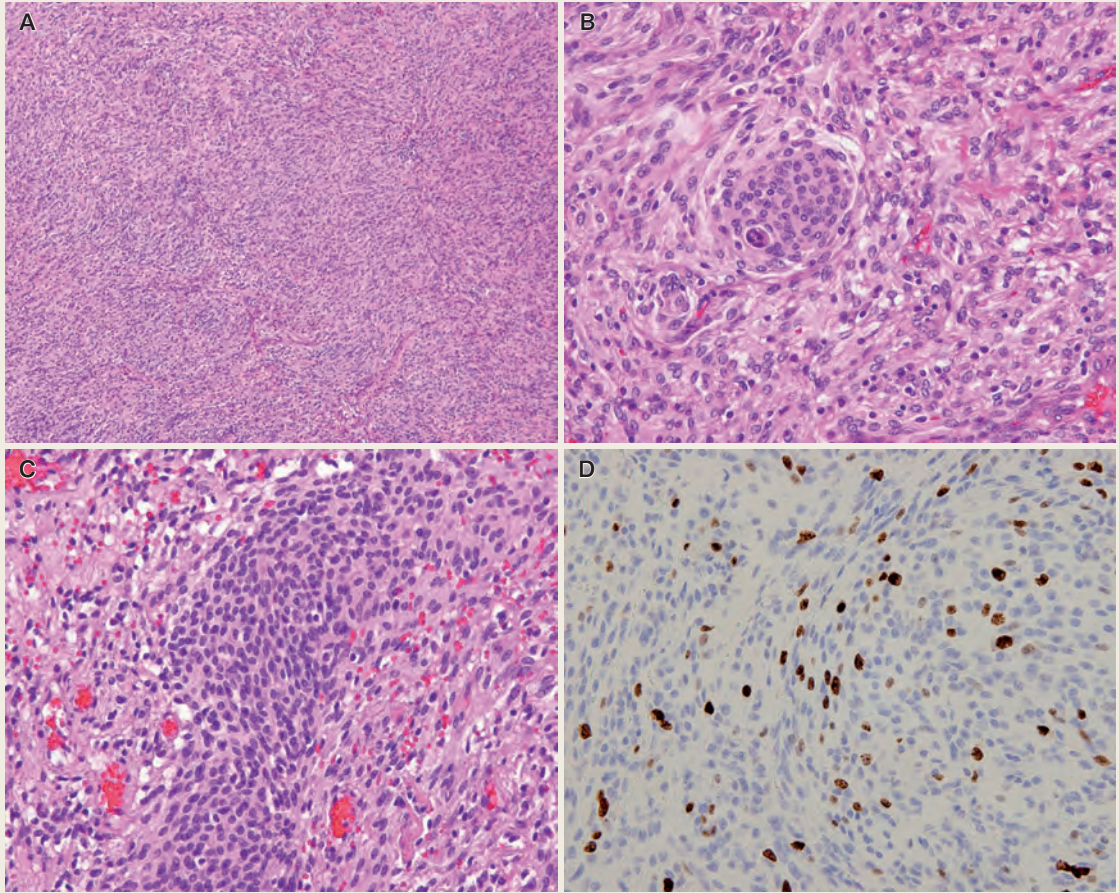


Fig. 3 Pathological images

A : Hematoxylin and Eosin (H-E) stain ($\times 100$) showed no necrosis.

B : H-E stain ($\times 400$) showed high cellularity and small cells with high nuclear/ cytoplasmic ratio.

C : H-E stain ($\times 400$) showed patternless pattern.

D : MIB-1 labeling index ($\times 400$) was 11.9% .

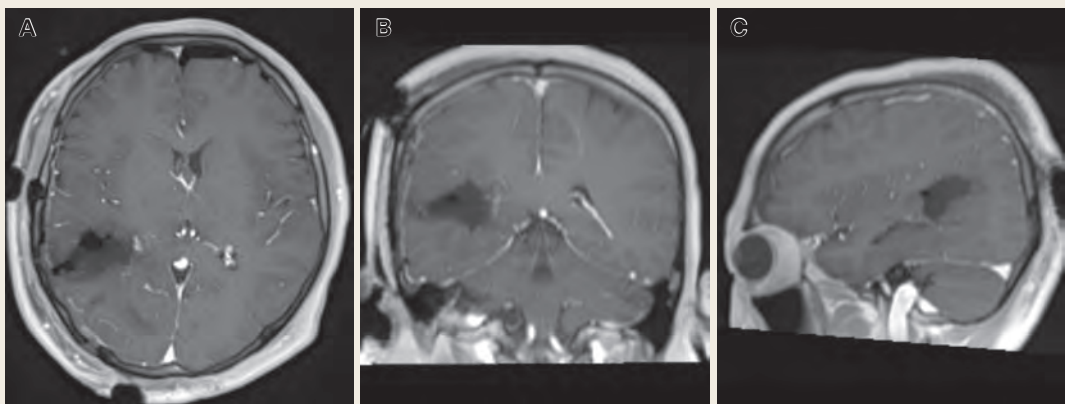


Fig. 4 Postoperative magnetic resonance images (MRI)

A-C : Gadolinium enhancement axial (A), coronal (B), and sagittal (C) T1-weighted images. The tumor was totally removed.

頭部外傷後に比較的短期間に髄膜腫が発生した報告⁵⁾などを渉猟し得たが、本症例ではこれらの髄膜腫発生の危険因子は有しておらず、稀少性の高い症例だと考えられる。

髄膜腫の増大速度は一般的に緩徐であり、年間 $0.03 \text{ cm}^3 \sim 2.62 \text{ cm}^3$ と幅はあるが、おおむね髄膜腫の増大速度は年間 1.0 cm^3 以下といわれている⁹⁾。本症例は1年半の経過で $0 \rightarrow 16.7 \text{ cm}^3$ まで増大しており、増大速度が極めて速いことが分かる。無症候性髄膜腫の増大因子として、60歳以下の若年、男性、腫瘍が25mm以上であること、非石灰化病変、周囲に浮腫性変化を伴うもの、T2 hyper intensity、非頭蓋底病変などが報告されている^{10, 11)}。本症例は発生前および術直前の画像のみであるため、発生・増大に関して詳細な検討は困難であるが、年齢、性別、非石灰化病変、非頭蓋底病変など前述した危険因子を有しており、症候性になる前に腫瘍の存在を指摘できていれば、注意深く経過を追う必要があった症例だと考えられる。

組織型も増大因子の1つであり、一般的にWHO gradeが上がるにつれ、増大速度は速くなる¹²⁾。WHO grade別のMIB-1 indexの陽性率を検討した報告では、WHO grade IでMIB-1 index 3.28%、WHO grade IIでMIB-1 index 9.95%、WHO grade IIIでMIB-1 index 12.18%とWHO gradeが上がるにつれ、MIB-1 indexの陽性率は上昇すると報告されている¹³⁾。高い増殖能をもつ髄膜腫の一つとしてAtypical meningioma、WHO grade IIがあるが、診断基準として、①高い細胞密度をもつこと、②核/細胞質比が高い小型細胞、③著明な核小体、④無構造のシート状増殖、⑤局所性壊死像の5項目のうち3つ以上の組織学的特徴を有する亜型と定義される。本症例は②、④のみ有しており、Atypical meningiomaの診断基準は満たさず、Transitional meningioma、WHO grade Iであるが、MIB-1 indexは11.9%と高値であった。MIB-1 indexが高値であったことに加えて、前述のAtypical meningiomaの診断基準①～⑤のいずれか1つの特徴を有する場合でも、再発リスクが高いという報告もあるため¹⁴⁾、通常よりも密に注意深く経過を見ていく必要があると考えている。

我々の渉猟し得た範囲内ではLunardiらが唯一、本症例と類似した比較的短期間に発生・増大した側脳室三角部髄膜腫の症例を報告していた³⁾。彼らは、60代女性のわずか1年の間に発生し、最大径60mmまで増大した症例を報告しているが、本症例と比較すると、術前のMRI画像で、腫瘍がT2等信号を呈している点、不整形の腫瘍で周囲に浮腫性変化を伴っていた点は類似していた。一方、本症例では認めなかったが、彼らの症例では腫瘍内部に壊死性変化を伴っていた。Simpson grade 2の摘出が行われ、病理診断では本症例と同様Meningothelial meningioma、WHO grade Iであった。MIB-1 indexは3%と低値であり、6カ月の経過観察期

間では再発所見は認めていないとのことであった。側脳室髄膜腫ではないが比較的短期間で発生・増大した髄膜腫の症例として3例の円蓋部髄膜腫の症例報告を渉猟した¹⁵⁾。腫瘍はすべて円蓋部に局在しており、3例とも Simpson grade 2 の摘出が行われた。最長で66カ月の経過観察期間で再発所見は認めていないとのことであった。術前後のMRIは未施行でMIB-1 indexの検討はなされていなかった。渉猟し得た文献に限りがあるため確定的なことはいえないが、比較的短期間で発生・増大した髄膜腫は部分摘出した場合であっても、WHO grade IでMIB-1 indexが低値であればその後は急速な再増大や再発を来さない可能性がある。本症例はWHO grade Iではあるが、MIB-1 indexは高値であり、Atypical meningiomaの診断基準項目を2項目有しているため、Simpson grade 1の摘出を行っているが、再発の可能性を念頭に密に注意深く経過を見ていく必要があると考えている。

IV. 結 語

まったく異常のない状態から急速に増大した髄膜腫は過去にも知られているが、既知の髄膜腫発生の危険因子を有さず、わずか1年半の間に発生・増大し、症候性となった極めて稀な側脳室髄膜腫の1例を経験した。半年から数年程度前の頭部画像診断で異常所見を認めなかったとしても、髄膜腫の可能性を完全には否定はできないことが示唆された。

文献

- 1) Ziyal IM, et al: Tentorial meningioma on follow-up presenting with sudden deterioration due to intra- and peritumoral hemorrhage. *Acta Neurochir (Wien)* 148: 1315-6, 2006
- 2) Li J, et al: A case report on cystic meningioma in cerebellopontine angle and recommendations for management. *Medicine (Baltimore)* 97: e13179, 2018
- 3) Lunardi P, et al: An unusual growth of an intraventricular meningioma: a case report. *Neurol Sci* 32: 669-71, 2011
- 4) Anda T, et al: Progression of intracranial meningioma during luteinizing hormone-releasing hormone agonist treatment for prostate cancer: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 54: 327-30, 2014
- 5) François P, et al: Post-traumatic meningioma: three case reports of this rare condition and a review of the literature. *Acta Neurochir (Wien)* 152: 1755-60, 2010
- 6) Sadetzki S, et al: Radiation-induced meningioma: a descriptive study of 253 cases. *J Neurosurg* 97: 1078-82, 2002
- 7) Claus EB, et al: Family and personal medical history and risk of meningioma. *J Neurosurg* 115: 1072-7, 2011
- 8) Gil M, et al: Risk of meningioma among users of high doses of cyproterone acetate as compared with the general population: evidence from a population-based cohort study. *Br J Clin Pharmacol* 72: 965-8, 2011
- 9) Nakamura M, et al: The natural history of incidental meningiomas. *Neurosurgery* 53: 62-70, 2003
- 10) Oya S, et al: The natural history of intracranial meningiomas. *J Neurosurg* 114: 1250-6, 2011
- 11) 橋本直哉: 無症候性脳腫瘍の自然経過と治療のタイミング. *脳外誌* 27: 422-30, 2018
- 12) Kasuya H, et al: Histological characteristics of incidentally found growing meningiomas. *J Med Invest* 59: 241-5, 2012
- 13) Roser F, et al: The Ki-67 proliferation antigen in meningiomas. Experience in 600 cases. *Acta Neurochir (Wien)* 146: 37-44, 2004
- 14) Marciscano AE, et al: Benign meningiomas (WHO Grade I) with atypical histological features: correlation of histopathological features with clinical outcomes. *J Neurosurg* 124: 106-14, 2016
- 15) Kudoh C, et al: Rapidly growing histologically benign meningiomas: cell kinetic and deoxyribonucleic acid ploidy features: report of three cases. *Neurosurgery* 37: 998-1000, 1995