

〈脳神経外科速報 vol.34 no.4 e20243404d, 2024〉

内視鏡下経鼻手術を施行した 下垂体腺腫に類似する画像所見を 呈した海綿静脈洞部血管腫： 症例報告

黒沢瑞穂¹⁾，神宮字伸哉¹⁾，蛭田 亮¹⁾，長井健一郎¹⁾，鳴瀬 悠¹⁾，Bakhit Mudathir¹⁾，
岩楯兼尚¹⁾，市川優寛¹⁾，藤井正純¹⁾

1) 福島県立医科大学脳神経外科 〒960-1295 福島県福島市光が丘1

Key Slide

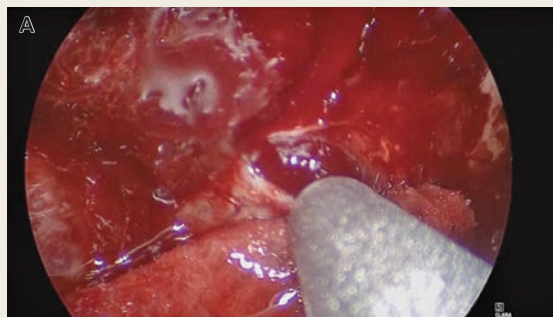


Fig. 4

A : Intraoperative photographs. A small incision in the dura at the base of the sella turcica revealed a reddish tumor surface that was different from pituitary adenomas (A).

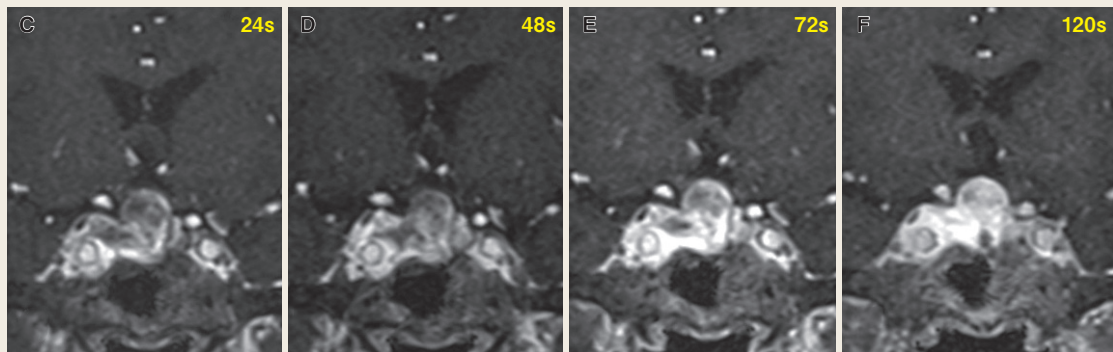


Fig. 5 Post irradiation images

C-F : Dynamic contrast-enhanced T1-weighted MR images, coronal view. These images were taken 24 (C), 48 (D), 72 (E), and 120 seconds (F) after gadolinium was administered. The lesion presented a “filling-in” pattern of enhancement on dynamic imaging (C-F).

Endoscopic endonasal surgery of a cavernous sinus hemangioma mimicking pituitary adenoma: A case report

Mizuho KUROSAWA¹, Shinya JINGUJI¹, Ryo HIRUTA¹, Kenichiro NAGAI¹, Yu NARUSE¹, Bakhit Mudathir¹, Kensho IWATATE¹, Masahiro ICHIKAWA¹, Masazumi FUJII¹

¹) Department of Neurosurgery, Fukushima Medical University

Cavernous sinus hemangioma (CSH) is a vascular malformation of the cavernous sinus. Depending on its growth extension direction, it may resemble a pituitary adenoma on the radiological images. Here, we present a patient with CSH that was difficult to differentiate preoperatively from a pituitary adenoma. Accordingly, the patient had endoscopic endonasal surgery to excise the lesion. The patient was a 73-year-old woman who presented with bilateral hemianopsia. MRI revealed a suprasellar tumor approximately 28 mm in diameter, with an enlarged sella turcica. The lesion compressed the optic chiasm bilaterally, involving the entire right cavernous sinus, and extended intracranially through the posterior wall of the cavernous sinus. MRI showed a markedly high signal on T2-weighted images, and a CSH was suspected; however, the gadolinium contrast uptake was insignificant. Furthermore, 4D-CTA showed poor contrast uptake even in the venous phase. Moreover, laboratory investigation of the pituitary hormones level results has led us to assume a diagnosis of nonfunctioning pituitary adenoma. Accordingly, endoscopic endonasal surgery was performed with the possibility of CSH in mind. Regarding the surgery, after the sella turcica dura was exposed, a small dural incision was made and blood came out, confirming the lesion was a CSH. Therefore, we did

not extend the dural incision further and kept the minimum size possible to allow a biopsy. After the red surface of the lesion was visualized, we made an incision, and a biopsy of the interior tissue was taken. Because a CSH was suspected on rapid histopathological diagnosis, the surgery was concluded with the biopsy only. Since the dural incision was small, we could perform pressure hemostasis by filling it with Surgicel (oxidized regenerated cellulose) mixed with fibrin glue, but the total blood loss was 520 mL. The final histopathological diagnosis was confirmed as CSH, and 54 Gy fractionated irradiation was administered, which resulted in the tumor shrinkage and the recovery of the patient's visual field disturbance. On radiological images, CSH may resemble a pituitary adenoma. Endoscopic endonasal surgery for such lesions should be performed cautiously because of the potential massive bleeding that may occur.

Key Words : cavernous sinus hemangioma, cavernoma, endoscopic endonasal surgery, pituitary adenoma

(Received June 23, 2023; Accepted September 20, 2023)
Correspondence to Mizuho KUROSAWA, M.D.,
Department of Neurosurgery, Fukushima Medical University,
1 Hikarigaoka, Fukushima-shi, Fukushima, 960-1295, Japan
E-mail: mizuho [at] fmu.ac.jp

I. 緒言

海綿静脈洞部血管腫 (cavernous sinus hemangioma) は海綿静脈洞に生じて髄外に発育する稀な血管奇形であるが、脳実質内に生じる血管腫とは組織学的には同一であっても、その画像所見は異なり、また手術時の病変からの出血の程度は大きく異なるため、注意が必要である¹⁻⁴⁾。この疾患は進展方向によっては下垂体腺腫のようにも見え、この疾患を知っていても、術前診断が難しい場合がある^{5,6)}。術前、下垂体腺腫との鑑別に迷い、内視鏡下経鼻手術を施行した海綿静脈洞部血管腫の症例を報告する。

II. 症例報告

患者：73歳女性。

主訴：視機能障害。

既往歴：高血圧、脂質異常症で内服中。

現病歴：2年くらい前より目の見えにくさを自覚していたが、近医眼科で白内障と診断され経過をみていた。右目の見えにくさが進行し、精査にて視野障害を指摘された。MRIにて下垂体腫瘍を認め、下垂体腺腫の疑いにて当科紹介となった。

初診時所見：意識清明、対座法では明らかな視野障害なし。自覚的な複視は認めず、眼球運動障害なし。瞳孔は左右同大。顔面の知覚障害なし。

眼科所見：矯正視力は右0.5、左0.7、静的視野測定では、右優位の両耳側半盲を認めた (Fig. 1 Left)。視力低下は白内障の影響と考えられた。

画像所見：頭部MRI上、病変は最大径28mm、トルコ鞍底が拡大し、鞍上部進展する病変は視交叉を左右ほぼ均等に圧排、右海綿静脈洞を完全に巻き込み、oculomotor cisternから頭蓋内進展しているような形状で右側頭葉を圧排していた

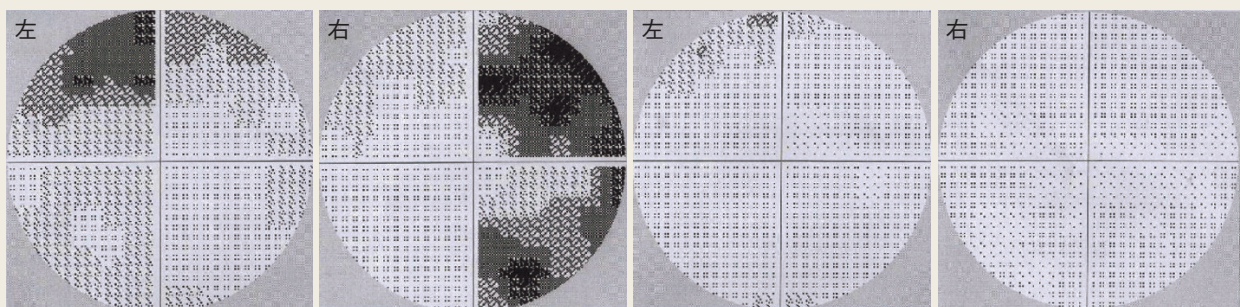


Fig. 1 Her preoperative (Left) and postradiation therapy (Right) visual field measurements (Humphrey visual field)

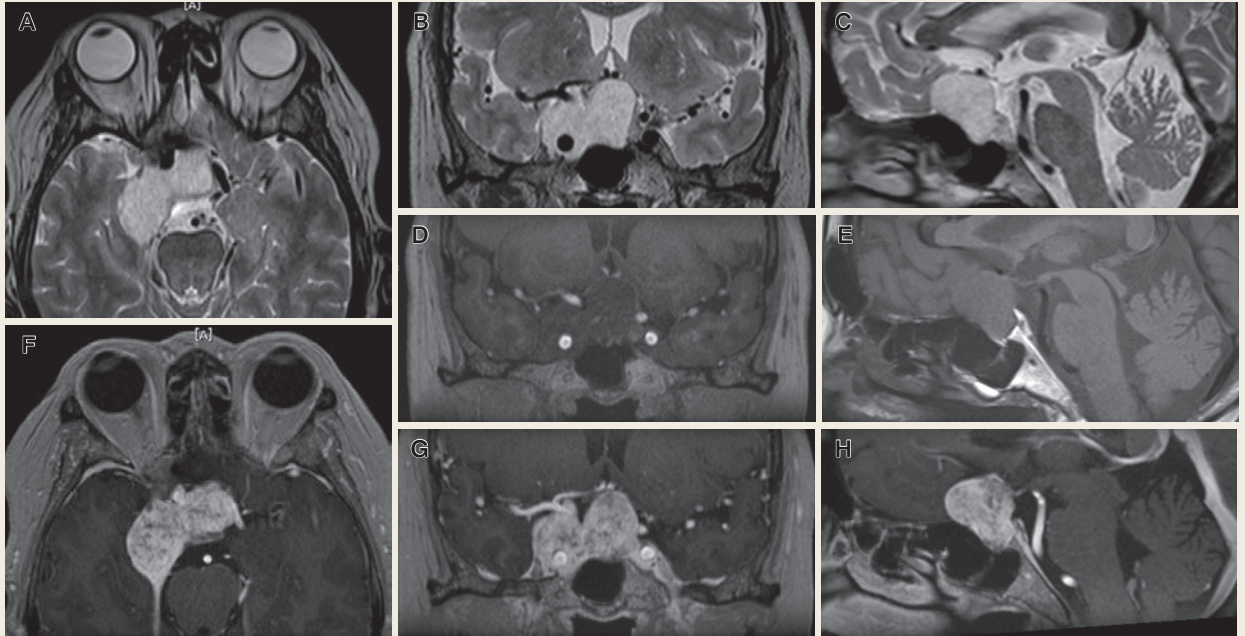


Fig. 2 Preoperative images

A-C : T2-weighted MR image, axial (A), coronal (B), sagittal view (C).

D, E : T1-weighted MR image, coronal (D), sagittal view (E).

F-H : Gadolinium-enhanced T1-weighted MR image, axial (F), coronal (G), sagittal view (H).

(Fig. 2A-H). 病変は T2 強調画像で著明な高信号を呈し、T1 強調画像では低信号に描出され、不均一に造影された。頭部 CT 上、石灰化は認めず、平衡相ではやはり不均一に造影されるも、4D-CTA の動脈相や静脈相の段階では造影効果は乏しかった (Fig. 3A-F)。

採血：下垂体ホルモンの空腹時一点採血の値は下記のとおりであり、異常高値や低値は認めなかった。GH 0.61 ng/mL (基準値 0.13 ~ 9.88 ng/mL), IGF-1 96 ng/mL (基準値 53 ~ 165 ng/mL), TSH 1.444 μ IU/mL (基準値 0.34 ~ 3.88 μ IU/mL), free T3 3.10 pg/mL (基準値 2.13 ~ 4.07 pg/mL), free T4 1.06 ng/dL (基準値 0.95 ~ 1.74 ng/dL), ACTH 24.50 pg/mL (基準値 7.2 ~ 63.3 pg/mL), コルチゾール 15.14 μ g/dL (基準値 5.3 ~ 22.5 μ g/dL), PRL 5.68 ng/mL (基準値 3.7 ~ 16.3 ng/mL), LH 25.13 mIU/mL (基準値 5.72 ~ 64.31 mIU/mL), FSH 52.65 mIU/mL (基準値 157.79 mIU/mL 以下)。

手術所見：画像所見からは海綿静脈洞部血管腫の可能性も疑ったが、非機能性下垂体腺腫と術前診断し、内視鏡下経鼻摘出術を施行した。トルコ鞍底開窓後に硬膜を少し切開してみると intercavernous sinus を切開したような出血をした。この時点で血管腫を疑い、硬膜切開を生検ができる最小限にのみ拡大した。出血の奥に病

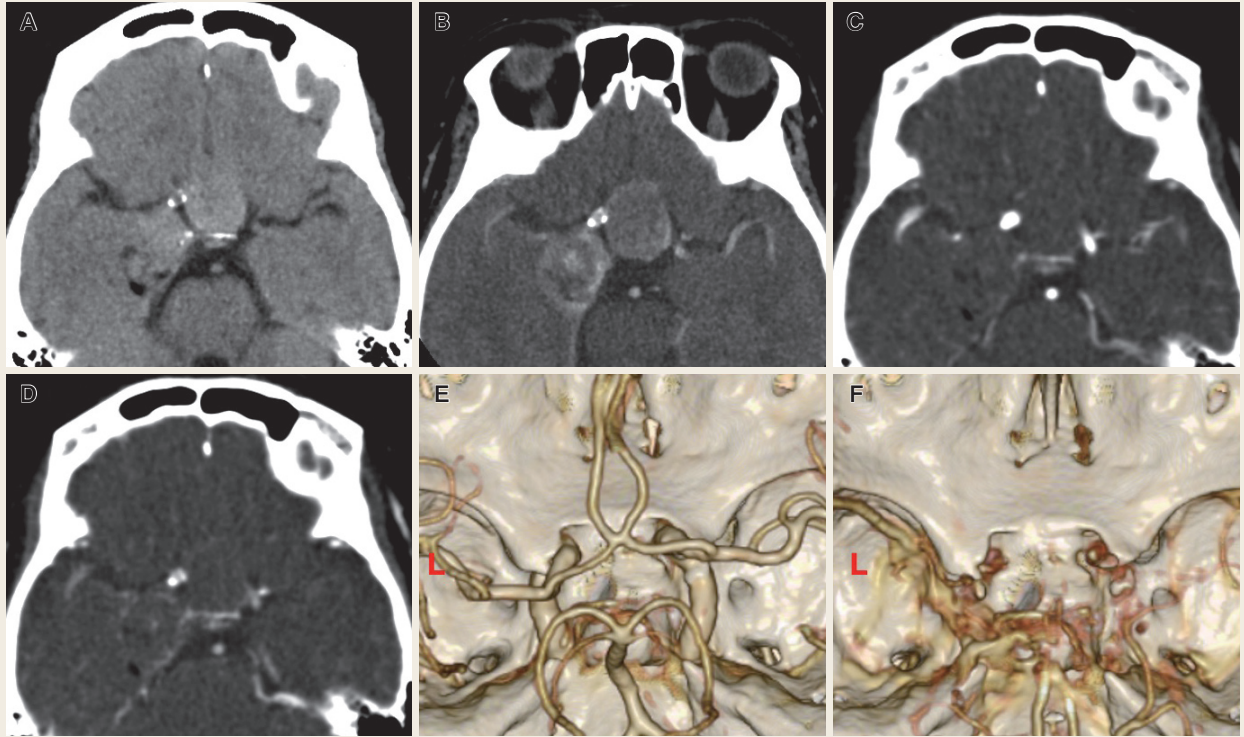


Fig. 3 Preoperative images

A-D : Plain (A) and contrast-enhanced (B), arterial (C) and venous phase (D) CT image, axial view.
 E, F : Arterial (E) and venous phase (F) 3DCT image.

変の赤い表面が視認され (Fig. 4A), 表面に割を入れて, その内部を数片生検した. その後, 内部が一部白色の腺腫のようにも見たため, キュレットを挿入したが, 白く見えた部分は硬めであり, 腺腫のように引っ掛かってはこなかった (Fig. 4B). 迅速診断で血管腫が疑われたため, 生検に留めた. 病変からの出血の勢いが強かったため, フロアブル止血剤を噴霧し, 圧迫した (Fig. 4C). そうしたところ出血量は減ったが, 完全には止まらなかったため, さらに硬膜開窓部位へのフィブリン糊付きサージセルの充填圧迫を5分程度行うことで止血は得られた. 硬膜切開を小さくしたので, 圧迫止血する範囲は限られていたが, それでも総出血量は520 mLであった.

術後経過: 最終診断は血管腫と確定した (Fig. 4D). 病変が視交叉に接していたため放射線照射は54 Gyを30回の分割照射とした. 照射終了より2カ月後のMRIでは病変の明らかな縮小を認めていた (Fig. 5A-F). また視野障害は術直後より改善し, 照射後には検査上も完全に消失していた (Fig. 1 Right).

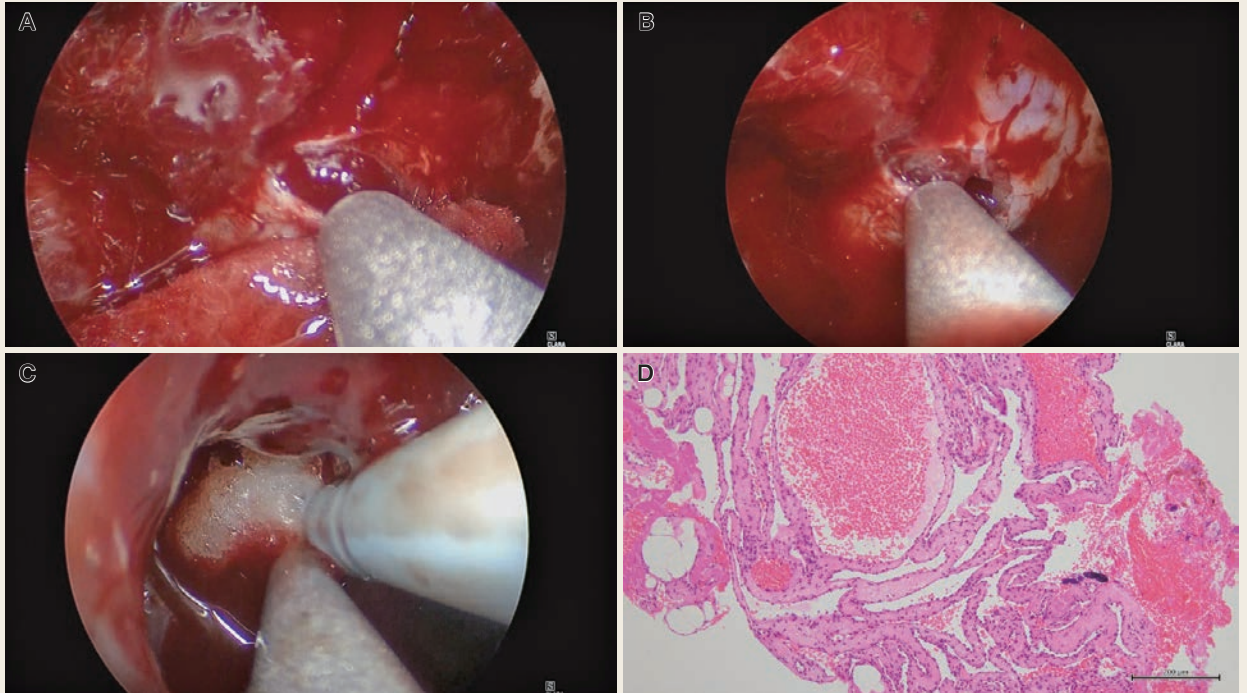


Fig. 4

A-C : Intraoperative photographs. A small incision in the dura at the base of the sella turcica revealed a reddish tumor surface that was different from pituitary adenomas (A). After biopsy, the white visible area inside the lesion was firm, unlike pituitary adenomas (B). To stop bleeding from the lesion, a flowable hemostatic matrix was injected into the bleeding site (C). D : Histopathological examination of tumor samples. Hematoxylin and eosin staining showed the formation of lumen-like structures of various sizes with thin walls, and the lumens were filled with blood. Scale bar = 200 μ m.

III. 考 察

1) 術前鑑別診断

海綿静脈洞部血管腫は海綿静脈洞内に生じ、病変は前方は上眼窩裂、後方はメッケル腔まで進展し、側方は海綿静脈洞の外側硬膜壁により制限されるが、これを挙上し、外側方向へ進展する³⁾。内側方向へは intercavernous sinus 内を進展し、トルコ鞍内から鞍上部に腫瘤を形成し得る。前後方向や外側方向に進展すると髄膜腫や神経鞘腫と間違われ、内側方向に進展すると下垂体腺腫に類似する可能性がある^{1, 3, 4)}。内側方向より外側方向へ進展することのほうが多く、それを反映して病変により生じる神経症状は、視野障害よりも眼球運動障害のほうが多い^{1, 7)}。MRI 上、T2 強調画像で著明な高信号であることが特徴的であるが、これは特異的な所見ではない^{1, 8, 9)}。ガドリニウム造影では均一に造影されることも不均一に造影されることもある^{1, 7, 9)}。また脳血管撮影を行う場合は腫瘍濃染がつかないことが多く³⁾、ついでとしても軽微なことがほとんどである^{9, 10)}。このことを反映するように、本症例

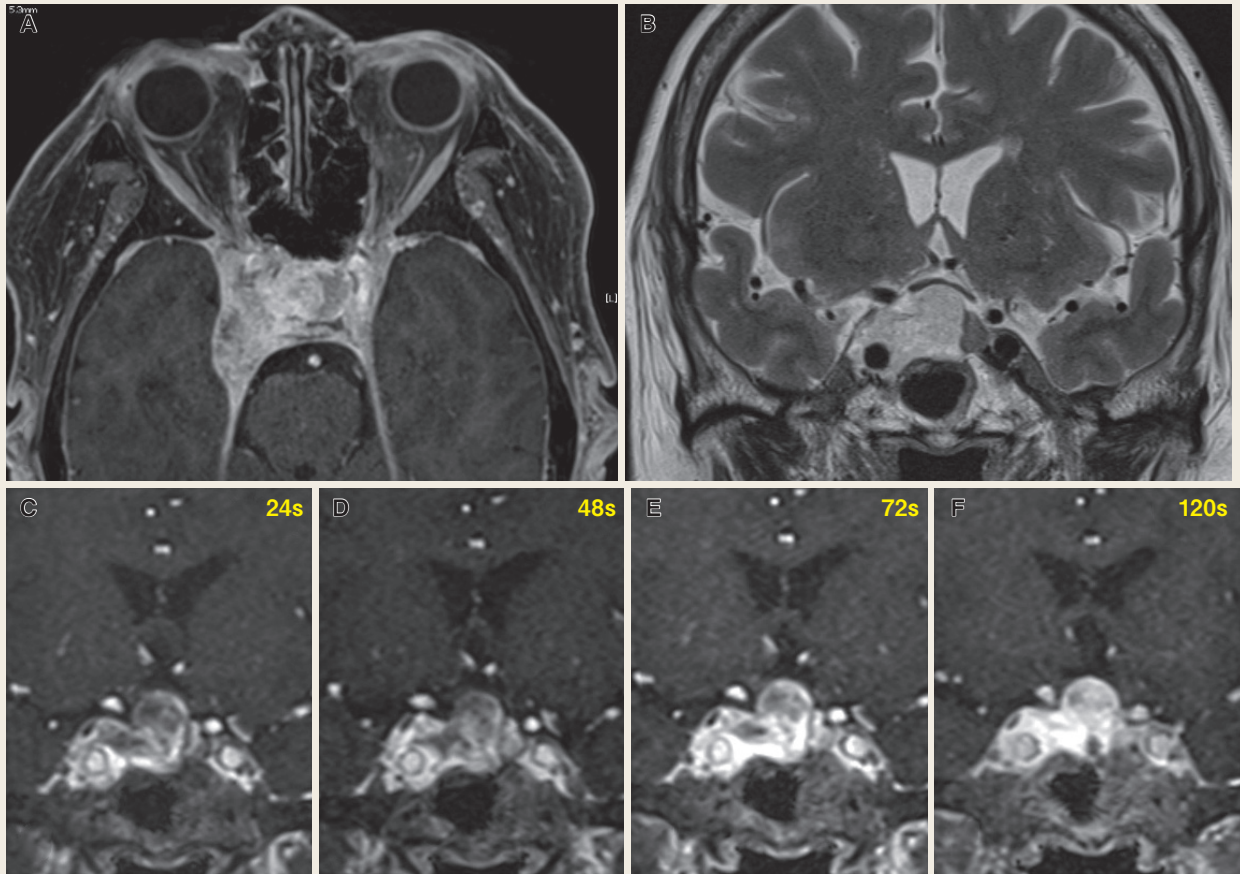


Fig. 5 Post irradiation images

A : Gadolinium-enhanced T1-weighted MR image, axial view.

B : T2-weighted MR image, coronal view.

C-F : Dynamic contrast-enhanced T1-weighted MR images, coronal view. These images were taken 24 (C), 48 (D), 72 (E), and 120 seconds (F) after gadolinium was administered. The lesion presented a “filling-in” pattern of enhancement on dynamic imaging (C-F).

での4DCTAでは動脈相も静脈相も病変はほとんど染まらなかったと思われた。

本症例ではT2強調画像で著明な高信号を呈し、海綿静脈洞を完全に巻き込んでいるので海綿静脈洞部血管腫も疑ったが、トルコ鞍底拡大を伴い、視交叉をほぼ均等に圧排し、後方部分への突出がoculomotor cisternから突出した形状から分葉化した下垂体腺腫に見えた。また血管腫は出血する腫瘍であり、CTやMRIでも強く造影されるのではないかとこの先入観も、血管腫より下垂体腺腫の可能性が高いという術前診断に至った。

海綿静脈洞部血管腫と他の腫瘍を鑑別する画像検査としてMRIのダイナミック撮像が有用である^{1, 8, 9)}。血管腫の場合、辺縁から中心へ向けての造影が進行していく所見が認められることがあり、filling in patternと呼ばれている。これは肝臓

の血管腫の特徴的な画像所見を参考にして撮像方法が考案された。通常の撮像でも、不均一に造影された病変を再度撮像すると均一に造影されることもあり、一種の filling in pattern と考えられ、同一症例でも撮像のタイミングにより病変の造影のされ方に差異が生じる可能性があることに注意する必要がある⁸⁾。本例では術後かつ放射線照射後ではあったが、ダイナミック撮像を施行した (Fig. 5C-F)。治療介入前の状況ではないので典型的ではないが、filling in pattern と思われる所見が認められた。

2) 治療方法

海綿静脈洞部血管腫を開頭で摘出する場合は、外側からの硬膜外アプローチが主となるが、出血量が多くなることや動眼神経や外転神経の障害による眼球運動障害の合併症が問題となる^{3, 4, 10)}。一方、内側進展し、下垂体腺腫と間違われるような病変に対しては内視鏡下経鼻手術が施行されることが多い^{5, 6)}。経鼻手術の場合、海綿静脈洞外側への進展がほとんどない症例に関しては、全摘出に近い手術が可能になることもあるが¹¹⁻¹³⁾、海綿静脈洞内より発生している発育様式より、そのような症例は多くはなく全摘出は難しい。亜全摘としたという報告が散見はされるが^{6, 7)}、出血が激しい場合に止血困難となる可能性や、また、術後残存腫瘍内に血腫を形成する可能性を考える必要がある。また病変と周辺構造物が癒着している可能性があり、視交叉を圧排しているような病変であれば、下垂体腺腫の被膜内摘出とは異なり、摘出に伴い視交叉を損傷する可能性もある⁷⁾。そのため、本疾患に対する経鼻内視鏡手術の有用性の報告とともに、そのリスクの高さから否定的な意見も少なくない^{3, 7, 13)}。本例はトルコ鞍内のみならず、頭蓋内方向への進展も大きく、経鼻手術単独では下垂体腺腫であっても全摘出は難しいと考えていたが、視路の減圧が必要と判断し経鼻手術を選択した。術中に血管腫と判明し部分摘出による合併症のリスクも高いと考え、我々は生検に留めることにした。それでも出血量は500 mL以上であった。過去の論文をメタ解析した報告では開頭も含まれるが、出血量の平均は971 mL (584 ~ 1,358 mL) とやはり多く、輸血が必要となるレベルである¹⁰⁾。今回、病変が血管腫である可能性も考え、トルコ鞍底の硬膜をまずは小切開した。病変自体を切開していないのに静脈性に出血したことは、この病変が intercavernous sinus 内に進展していることを反映していると思われた。小切開し、外観上、下垂体腺腫ではないことが判明したため、一部の生検に留める方針に切り替えた。硬膜開窓部を狭くしたため、圧迫止血を行うことが比較的容易であった。下垂体腺腫を考えつつも、血管腫の可能性が完全には否定できない場合、硬膜を大きく切開せずに小切開してみて、病変の外観を確認することは止血の観点からは有

用と思われた。また、この海綿静脈洞部血管腫のように止血に難渋する病変に対しては、サージフロー、フロシールといったフロアブル止血剤（ヒトトロンビン含有ゼラチン使用局所止血剤）が有用である。この止血剤は、その半固形状の形状により出血点に到達しやすく、血液と反応して膨張することによりタンポナーデ効果を発揮し、さらに1次止血と2次止血の強力な止血効果を兼ね備えている¹⁵⁾。本症例でも同製剤を使用し、出血量を減らした後に、フィブリン糊付きサージセルで充填圧迫し完全な止血を得た。

海綿静脈洞部血管腫には放射線照射が有効であり¹⁰⁾、定位放射線手術や定位放射線治療が施行されたほとんどの症例で病変の縮小と症状改善を認めている^{2, 10, 14)}。病変による神経症状を緩和するために摘出が有用との考えもあるが、メタ解析の結果では、手術と放射線照射の治療成績を比較すると、視機能の改善に関しては同等の治療効果が認められ、外転神経麻痺の改善に関しては放射線照射のほうが勝る¹⁰⁾。そのため、残存腫瘍に放射線照射を行うつもりであれば、手術で無理に減圧を行う必要性は少ないと思われる。本例は大型の病変であり、視交叉も圧迫していたため、分割照射を選択したが、良好な腫瘍縮小効果と視機能改善を認めていた。

当施設では典型的な画像所見を呈する海綿静脈洞部血管腫に対して生検は行わずに放射線照射を施行する方針としている。本例は画像上、下垂体腺腫との鑑別に迷い、手術を施行した。仮に術前にダイナミック撮像を行い血管腫の可能性が高かったとしても、視交叉を圧排している病変への放射線治療が必要となるため、組織診断は必要と考え、本例に限ると生検のための手術は妥当であったと思われた。

IV. 結 語

海綿静脈洞部血管腫は下垂体腺腫など別の腫瘍性病変と類似する場合があるが、MRIのダイナミック撮像はその鑑別に有用である。血管腫の可能性も疑い内視鏡下経鼻手術を行う際には、止血のことを念頭に置き、まずは硬膜を小切開して病変を確認し、病変採取後に圧迫止血しやすくしたほうがよいと思われる。

文献

- 1) Montoya F, et al: Cavernous Sinus Hemangioma: Imaging Diagnosis and Surgical Considerations. *World Neurosurg* 146: e30-7, 2021
- 2) Lee CC, et al: Gamma Knife radiosurgery for hemangioma of the cavernous sinus. *J Neurosurg* 126: 1498-505, 2017
- 3) Goel A, et al: Cavernous Hemangioma of Cavernous Sinus: An Outcome Report of 45 Surgically Treated Patients. *World Neurosurg* 159: 381-9, 2022
- 4) Li ZH, et al: Surgical Management and Outcomes of Cavernous Sinus Hemangiomas: A Single-Institution Series of 47 Patients. *World Neurosurg* 122: e1181-94, 2019
- 5) Das S, et al: Intrasellar cavernous hemangioma presenting as pituitary adenoma: A report of two cases and review of the literature. *Clin Neuropathol* 37: 64-7, 2018
- 6) Al-Saiari S, et al: Intrasellar cavernous hemangiomas: A case report with a comprehensive review of the literature. *Surg Neurol Int* 12: 58, 2021
- 7) Rubino F, et al: Is endoscopic resection a useful technique for a cavernous sinus sellar cavernoma? A case report and literature review. *Br J Neurosurg*: 1-8, 2021
- 8) Jinhu Y, et al: Dynamic enhancement features of cavernous sinus cavernous hemangiomas on conventional contrast-enhanced MR imaging. *AJNR Am J Neuroradiol* 29: 577-81, 2008
- 9) Naik S, et al: Dynamic Contrast-Enhanced Magnetic Resonance Imaging in Diagnosis of Cavernous Hemangioma of Cavernous Sinus. *J Neurosci Rural Pract* 8: 311-3, 2017
- 10) Helmy M, et al: The Treatment Outcomes of Radiotherapy and Surgical Treatment for Patients with Cavernous Sinus Hemangioma: A Meta-Analysis. *World Neurosurg* 178: e345-54, 2023
- 11) Nishimura F, et al: Hemorrhagic Cavernous Sinus Hemangioma with Sudden-Onset Abducens Palsy. *World Neurosurg* 112: 1-5, 2018
- 12) Fraser JF, et al: Transnasal endoscopic resection of a cavernous sinus hemangioma: technical note and review of the literature. *Skull Base* 18: 309-15, 2008
- 13) Patrona A, et al: Endoscopic endonasal surgery for nonadenomatous, nonmeningeal pathology involving the cavernous sinus. *J Neurosurg* 126: 880-8, 2017
- 14) Wang X, et al: Hypofractionated stereotactic radiosurgery: a new treatment strategy for giant cavernous sinus hemangiomas. *J Neurosurg* 128: 60-7, 2018
- 15) Ye IB, et al: FLOSEAL Versus SURGIFLO in Lumbar Surgery: Similar Outcomes, Different Costs in a Matched Cohort Analysis. *World Neurosurg* 177: e425-32, 2023