

. 论 著 .

非海绵窦区硬膜海绵状血管畸形 2 例报道并文献复习

航 盖 冯 煜 谢天浩 宋 健 徐国政 姚国杰 骆 纯

【摘要】目的 探讨非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形的影像学特点、诊断及治疗。**方法** 回顾性分析 2 例经术后病理证实的非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形的临床资料,结合相关文献进行分析。**结果** 1 例术前考虑大脑镰旁脑膜瘤,另 1 例术前考虑左侧横窦及天幕脑膜瘤。2 例病灶均全切除,术后病理均证实为硬脑膜海绵状血管畸形,术后均恢复良好,未出现手术并发症,无需放疗等后续治疗。术后随访 1 年以上无复发。**结论** 非海绵窦区硬膜海绵状血管畸形极少见,容易误诊为脑膜瘤。手术切除时,应先阻断肿瘤位于硬膜或静脉窦的肿瘤基底,并尽量整块切除,否则可能遭遇汹涌的出血。该类疾病手术往往可安全有效的全切除病变,预后良好。

【关键词】 海绵状血管畸形;硬脑膜;非海绵窦区;显微手术;疗效

【文章编号】 1009-153X(2022)08-0656-03 **【文献标志码】** A **【中国图书资料分类号】** R 739.41; R 651.1*1

Diagnosis and treatment of dural-based cavernous hemangiomas outside the cavernous sinus: report of 2 cases and review of literature

HANG Gai^{1,2}, FENG Yu^{1,2}, XIE Tian-hao², SONG Jian², XU Guo-zheng², YAO Guo-jie², LUO Chun³. 1. Medical College, Wuhan University of Science and Technology, Wuhan 430065, China; 2. Department of Neurosurgery, General Hospital of Central Theater Command, Wuhan 430070, China; 3. Department of Neurosurgery, Changzheng Hospital, Second Military Medical University, Shanghai 200003, China

【Abstract】 Objective To investigate the imaging features, diagnosis and treatment of dural-based cavernous malformations outside the cavernous sinus. **Methods** The clinical data of 2 patients with dural-based cavernous malformations outside the cavernous sinus were retrospectively analyzed, and the related literatures were reviewed. **Results** One patient was diagnosed as parafalcine meningioma and the other one was diagnosed as left transverse sinus and tentorial meningioma before operation. Both lesions were completely resected, and postoperative pathological examination was confirmed as dural-based cavernous malformation. Both patients recovered well after surgery without surgical complications. The follow up (more than 1 year) showed no recurrence. **Conclusions** The dural-based cavernous malformations outside the cavernous sinus are very rare, and they are easy to be misdiagnosed as meningioma before operation. During surgical resection, the tumor base located in the dura or venous sinus should be blocked first, and an en bloc resection should be done as much as possible in order to reduce heavy hemorrhage. Surgery is often safe and effective in total resection with good prognosis for the patients with dural-based cavernous malformations outside the cavernous sinus.

【Key words】 Dural-based cavernous malformations cavernous sinus; Cavernous hemangioma; Diagnosis; Treatment

颅内海绵状血管畸形占颅内血管畸形的 3%~13%,常见于大脑半球的脑实质、基底节、脑干等部位,少数位于桥小脑角、松果体、脑室、颅神经、硬脑膜和硬脑膜窦等^[1]。起源于硬脑膜的海绵状血管畸形非常少见,常位于海绵窦内,而位于非海绵窦区则极罕见。与海绵窦内、脑实质内海绵状血管畸形相

比,非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形,在临床特征、影像学特点、治疗方案等方面有着显著的不同。本文报道 2 例非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形,现结合文献总结如下。

1 病例资料

病例 1:49 岁男性,因轻型颅脑损伤后行头颅 CT 发现颅内占位 1 个月于 2012 年 9 月 25 日入院。入院时无头痛、癫痫,也无肢体感觉、运动功能障碍。术前头颅 CT 示右侧顶部大脑镰旁占位,大小约 2.2 cm×2.1 cm,呈稍高密度,密度均匀,增强后明显强化,病变与大脑镰关系密切,未见钙化(图 1A、1B)。术前头颅 MRI 显示病变信号均匀,呈 T₁低信号、T₂高

doi:10.13798/j.issn.1009-153X.2022.08.010

作者单位:430065 武汉,武汉科技大学医学院(航 盖、冯 煜);
430070 武汉,中国人民解放军中部战区总医院神经外科(航 盖、
冯 煜、谢天浩、宋 健、徐国政、姚国杰);200003 上海,中国人民解放军海军军医大学附属长征医院神经外科(骆 纯)

通讯作者:谢天浩,E-mail:xrang@163.com

骆 纯,E-mail:boyluochun@126.com

信号,增强后呈不均匀强化,未见脑膜尾征(图1C、1D)。术前诊断为大脑镰旁脑膜瘤(中1/3)。完善术前准备,2012年10月5日,采用右顶部开颅、经纵裂手术治疗。术中见病变呈鲜红色,桑椹状,基底位于大脑镰(图1E)。双极电凝烧灼基底后,整块切除病灶。病灶切除后可见病变同蛛网膜界限清楚,位于蛛网膜外。术后病理证实为海绵状血管畸形(图1F)。术后恢复顺利,无癫痫等并发症。随访至2015年6月30日,未复发,无并发症。

病例2:55岁男性,因头部胀痛6 d于2021年1月5日入院。入院体格检查未发现明显的神经系统阳性体征。术前头颅CT平扫及增强显示左侧枕叶类圆形高密度影,边界清楚,临近脑实质受压,增强后

病变不均匀明显强化,跨左小脑幕生长(图2A)。术前头颅MRI增强显示左枕明显强化的占位性病变(图2B)。术前诊断为左侧横窦及天幕脑膜瘤。2021年1月13日,采用右侧卧位枕下乙状窦后入路手术治疗,术中见病灶呈紫红色,位于横窦内;病灶所在区域横窦扩张,无血流通过;病灶基底位于横窦及天幕硬脑膜。采用丝线结扎已闭塞的远近端横窦并离断,再沿天幕电灼位于天幕的基底部并游离天幕,最终整块切除病灶(图2C、2D)。术后病理证实为海绵状血管畸形。术后恢复顺利,无癫痫等并发症。随访至2022年3月31日,未复发,无并发症。

2 讨论

脑实质外海绵状血管畸形非常少见,多数为硬脑膜海绵状血管畸形,容易被误诊为脑膜瘤。硬脑膜海绵状血管畸形根据部位分为海绵窦区和非海绵窦区。海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形,也被称作颅中窝底硬脑膜海绵状血管畸形,起源于海绵窦壁,约占海绵窦内良性病变的3%。非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形更加罕见。

硬脑膜海绵状血管畸形的发病机制仍不清楚。脑实质内海绵状血管畸形的增大是由于病变反复出血;而脑实质外硬脑膜海绵状血管畸形,尚无反复出

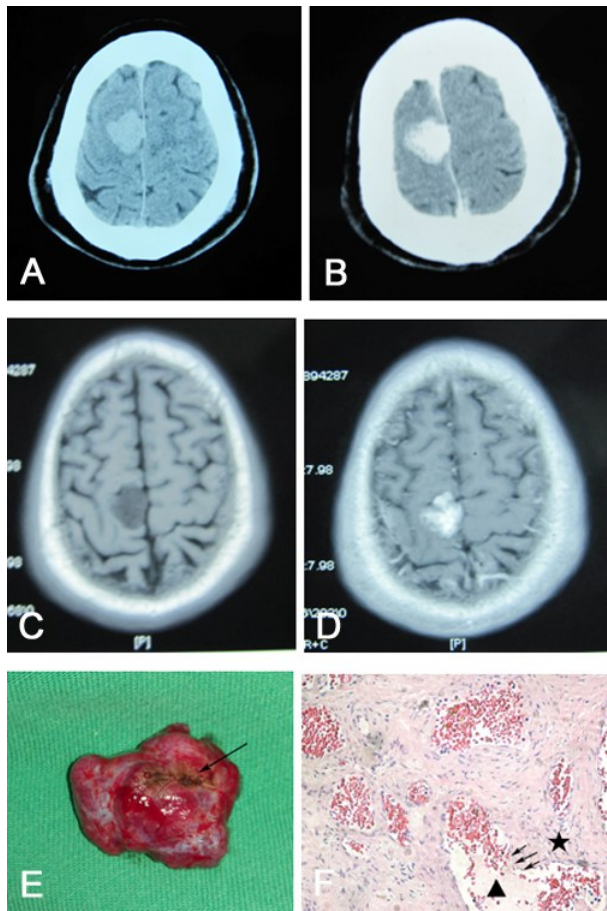


图1 大脑镰旁硬膜海绵状血管畸形术前影像学表现及术后病理表现
A、B. 术前MRI显示右侧顶部大脑镰旁占位,大小约2.2 cm×2.1 cm,呈稍高密度,密度均匀,增强后明显强化,与大脑镰关系密切,未见钙化;C、D. 术前MRI显示病变信号均匀,呈T₁低信号、T₂高信号,增强后不均匀强化,未见脑膜尾征;E. 肿瘤整块切除,肿瘤呈鲜红色,桑椹状,箭头指肿瘤附着于硬膜的基底;F. 术后病理检查(HE,×200),光镜下可见病变由许多窦状扩张的血管腔(▲)组成,管壁由扁平内皮细胞(↓)组成,扩张的血管腔之间由纤维间质组织(★)填充

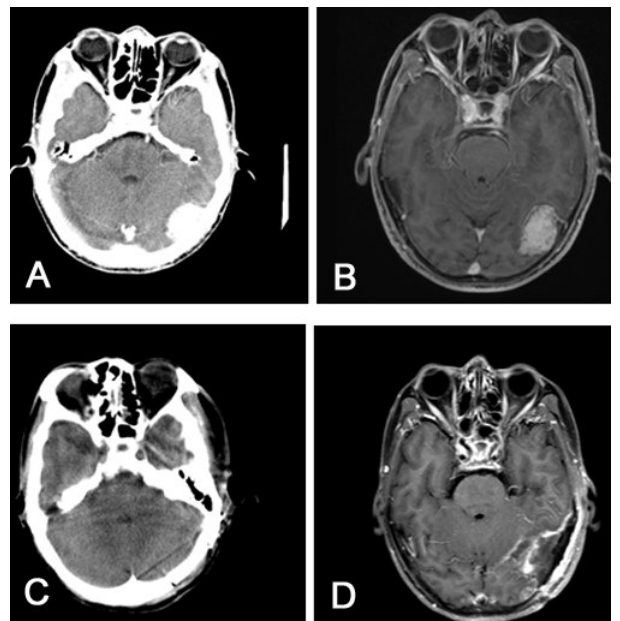


图2 左侧横窦区硬膜海绵状血管畸形手术前后影像表现
A. 术前CT增强显示左枕部团块状高密度肿块影,病灶明显均匀强化;B. 术前MRI增强显示左枕部团块状不均匀强化灶,大小约32 mm×22.5 mm×37.3 mm,位于左侧横窦区;C. 术后CT平扫见左侧枕骨呈术后改变,相应层面颅内及皮下可见气体密度影;D. 术后MRI增强见原强化团块影已切除

血的报道,相关的机制可能是:毛细血管增生、血栓形成、激素、血管扩张等^[2]。非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形可发生于任何年龄,无性别差异。

硬脑膜海绵状血管畸形临床表现与病灶位置有关,无特异性。海绵窦内病变最常表现为动眼神经麻痹,也可伴有三叉神经症状。非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形,可发生于硬脑膜的各个部位,依据肿瘤位置可表现为相应的神经功能障碍,如嗅觉丧失、偏盲、视力下降、听力下降、失语、面瘫、共济失调^[3]、双侧视乳头水肿^[4]等;也有病人无明显症状,意外检查发现。和脑实质内病变相比,以癫痫起病较少。

非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形的影像学表现,与脑内病变有显著的不同,其没有特征性影像学表现,常常有和脑膜瘤类似的影像学表现,很容易被误诊为脑膜瘤^[1,2,5-8]。CT 平扫常呈等或稍高密度,增强后有不同程度强化,部分病例可见脑膜瘤尾征^[5,7,9-12],少部分病例可见钙化^[11]。血管造影常表现为无血管团块甚至阴性表现,仅部分可见肿瘤血管影或静脉期血管显影。这和海绵窦内硬脑膜海绵状血管畸形不同,海绵窦内病变血管造影往往表现为浓密血管团。本文病例 1 头部 MRI 显示病变同大脑镰关系密切,病变信号均匀,强化明显;病例 2 头部 MRI 显示左枕部团块状不均匀强化灶,病灶紧邻左侧横窦,左额颞枕顶叶皮层及皮层下见斑点及斑片状强化灶。本文两例影像学特征同脑膜瘤非常相似,术前也都被误诊为脑膜瘤。因此,仅仅依靠影像学改变很难鉴别硬脑膜海绵状血管畸形和脑膜瘤。

对于海绵窦内硬脑膜海绵状血管畸形,手术是常用的治疗手段。非海绵窦区硬脑膜海绵状畸形的治疗原则同样是安全有效的全切除病变。手术切除时,应先阻断病灶位于硬脑膜或静脉窦的基底部分,并尽量整块切除,否则可能遭遇汹涌的出血。较好的处理静脉窦远近端,亦可很好地避免术中大出血。因此,非海绵窦区硬脑膜海绵状畸形大多可以安全有效地全切除病变。对手术时机的把握,有学者认为只有当病变引起明显的症状或病变迅速增大时才应考虑手术治疗^[5]。非海绵窦区硬膜海绵状畸形的预后一般较好。本文 2 例完整切除病变,术中出血少,预后良好。

总之,非海绵窦区硬脑膜海绵状血管畸形极其少见,常常仅有轻微的临床症状,如眩晕或头痛等,部分病人甚至无任何症状。影像学表现极似脑膜瘤,容易误诊,因此应该引起重视。手术切除时,应先阻断病灶位于硬膜或静脉窦的基底部分,并尽量整

块切除,否则可能遭遇汹涌的出血。该类病变手术常可安全有效全切,预后良好。

【参考文献】

- [1] Ito M, Kamiyama H, Nakamura T, *et al.* Dural cavernous hemangioma of the cerebellar falx [J]. *Neurol Med Chir (Tokyo)*, 2009, 49(9): 410-412.
- [2] Boockvar JA, Stiefel M, Malhotra N, *et al.* Dural cavernous angioma of the posterior sagittal sinus: case report [J]. *Surg Neurol*, 2005, 63(2): 178-181.
- [3] Bteich F, Kassab C, El Hage G, *et al.* Atypical presentation of parietal convexity dural-based cavernous hemangioma: a case report and review of literature [J]. *World Neurosurg*, 2019, 128: 403-407.
- [4] Jagannatha AT, Srikantha U, Khanapure K, *et al.* Giant posterior fossa dural cavernoma in a child [J]. *Childs Nerv Syst*, 2017, 33(4): 691-694.
- [5] Hwang SW, Pfannl RM, Wu JK. Convexity dural cavernous malformation with intradural and extradural extension mimicking a meningioma: a case report [J]. *Acta Neurochir (Wien)*, 2009, 151(1): 79-83.
- [6] Gutiérrez-González R, Casanova-Peño I, Porta-Etessam J, *et al.* Dural cavernous haemangioma of the anterior cranial fossa [J]. *J Clin Neurosci*, 2010, 17(7): 936-938.
- [7] Di Vitantonio H, De Paulis D, Ricci A, *et al.* Cavernous hemangioma of the dura mater mimicking meningioma [J]. *Surg Neurol Int*, 2015, 6(Suppl 13): S375-378.
- [8] Cruz AS, Jeyamohan S, Moisi M, *et al.* Dural-based cavernoma of the posterior cranial fossa mimicking a meningioma: a case report [J]. *Cureus*, 2016, 8(4): e560.
- [9] Kim JS, Yang SH, Kim MK, *et al.* Cavernous angioma in the falx cerebri: a case report [J]. *J Korean Med Sci*, 2006, 21(5): 950-953.
- [10] Lee AG, Parrish RG, Goodman JC. Homonymous hemianopsia due to a dural cavernous hemangioma [J]. *J Neuroophthalmol*, 1998, 18(4): 250-254.
- [11] Shen WC, Chenn CA, Hsue CT, *et al.* Dural cavernous angioma mimicking a meningioma and causing facial pain [J]. *J Neuroimaging*, 2000, 10(3): 183-185.
- [12] Wang X, Liu JP, You C, *et al.* Convexity dural cavernous haemangioma mimicking meningioma: a case report [J]. *Br J Neurosurg*, 2016, 30(3): 345-347.

(2022-04-08 收稿, 2022-07-03 修回)