

- institutional guideline for the treatment of cerebrospinal fluid shunt-associated infections [J]. *Acta Neurochir (Wien)*, 2012, 154:1691.
- [12] 中华神经外科分会神经创伤专业组. 中华创伤学会分会神经创伤专业组. 颅脑创伤后脑积水诊治中国专家共识[J]. *中华神经外科杂志*, 2014, 30:840.
- [13] 龚江标, 温良, 杨小锋. 不同分流方式治疗创伤后脑积水的疗效及并发症分析[J]. *中华创伤杂志*, 2016, 32:105.
- [14] Chiewvit S, Nuntaaree S, Kanchanapiboon P, *et al.* Assessment lumboperitoneal or ventriculoperitoneal shunt patency by radionuclide technique: a review experience cases [J]. *World J Nucl Med*, 2014, 13:75.
- [15] Yadav YR, Pande S, Raina VK, *et al.* Lumboperitoneal shunts: Review of 409 cases [J]. *Neurol India*, 2004, 52:188.
- [16] Wang VY, Barbaro NM, Lawton MT, *et al.* Complications of lumboperitoneal shunts [J]. *Neurosurgery*, 2007, 60:1045.
- [17] 张赛. 特发性正常压力脑积水诊疗思考 [J]. *中华神经外科杂志*, 2011, 27:642.
- [18] Aoki T, Ayuzawa S, Matsuo R, *et al.* Laparoscopy-assisted ventriculoperitoneal and lumboperitoneal shunt surgery [J]. *No Shinkei Geka*, 2012, 40:511.
- [19] Sosin M, Sofat S, Felbaum DR, *et al.* Laparoscopic-assisted peritoneal shunt insertion for ventriculoperitoneal and lumboperitoneal shunt placement; An institutional experience of 53 consecutive cases [J]. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech*, 2015, 25:235.
- [20] 贺军华, 金心, 林亦海, 等. 气腹穿刺置管技术在腰大池-腹腔分流术中的应用 [J]. *中华神经外科杂志*, 2016, 32:1061.

(收稿 2018-05-25 修回 2018-09-11)

DOI:10.3969/j.issn.1672-7770.2019.01.018

· 临床研究 ·

颅骨海绵状血管瘤手术治疗临床分析

熊方令, 刘保华, 高明明, 袁璞, 张怀兵, 高宜录

【摘要】 **目的** 探讨原发性颅骨海绵状血管瘤的临床表现、影像学特征、病理学特点及治疗措施。**方法** 回顾分析 6 例原发性颅骨海绵状血管瘤患者的临床资料;并结合文献对其临床表现、影像学特点、治疗方法进行分析。**结果** 本组患者的原发性颅骨海绵状血管瘤为单发,临床症状各异。头颅 CT 表现为肿瘤呈“日光放射征”改变,周边骨质硬化。头颅 MRI 示,肿瘤呈 T₁WI 不均匀中-高信号, T₂WI 不均匀高信号,增强扫描不均匀强化。手术切除包括肿瘤在内的颅骨及周边硬化颅骨后,患者的临床症状均消失,预后良好。术后病理检查示,病变表现为蜂窝状肿块,由充填有多量血细胞的囊状血管组成。**结论** 原发性颅骨海绵状血管瘤较为罕见,手术治疗效果确实可靠;术后病理检查为其最终确诊的有效手段。

【关键词】 海绵状血管瘤; 颅骨; 治疗

【中图分类号】 R628 **【文献标志码】** D **【文章编号】** 1672-7770(2019)01-0077-03

Clinical analysis on treatment of cranial bone cavernous hemangioma XIONG Fang-ling, LIU Bao-hua, GAO Ming-ming, *et al.* Department of Neurosurgery, Suqian People's Hospital of Nanjing Drum Tower Hospital Group, Suqian 223800, China

Corresponding author: LIU Bao-hua

Abstract: Objective To explore the clinical manifestation, imaging characteristic, pathological feature and treatment of primary cavernous hemangiomas of the skull. **Method** The clinical data of 6 patients with the primary cavernous hemangioma was analyzed retrospectively. Combined with the relevant literatures, the clinical manifestation, imaging characteristic and therapeutic method were also analyzed. **Results** Primary cranial cavernous hemangiomas were rare and tend to be solitary lesions. The clinical findings were variable. CT image showed a sunburst sign in the center and reactive sclerosis at the margins. MRI demonstrated a inhomogeneous enhancement mass. T₁-weighted sequences gave heterogeneous medium to high intensity signals, and T₂-weighted image showed heterogeneous high signals. After craniectomy with total resection, the clinical presentations were disappeared and got good prognosis. On histopathology, they were alveolate masses and composed of sinusoidal blood vessels. **Conclusions**

基金项目:宿迁市科技支撑计划项目(S201613)

作者单位: 223800 宿迁,南京鼓楼医院集团宿迁市人民医院神经外科(熊方令,刘保华,高明明,袁璞,张怀兵);南通大学附属医院神经外科(高宜录)

通信作者:刘保华

Primary cavernous hemangiomas of the skull are rare, and the effect of surgical procedures are reliable, which can provide the final diagnosis by the pathological features of surgical specimens.

Key words: cavernous hemangiomas; skull; treatment

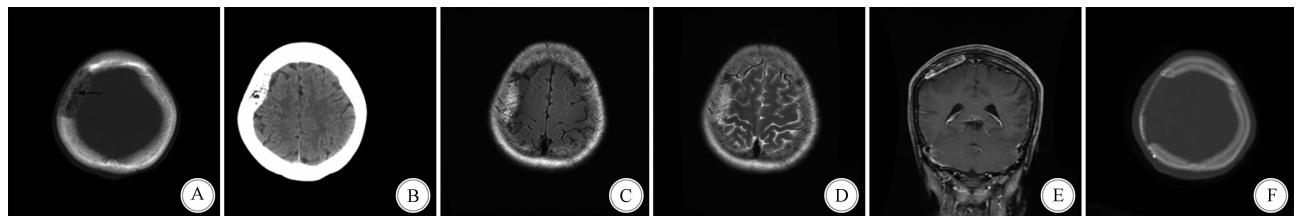
骨骼海绵状血管瘤是一种罕见的良性血管性肿瘤,占所有骨肿瘤的0.7%~1%^[1];最常发生于脊柱,其次为颅骨^[2],原发性颅骨海绵状血管瘤占颅骨良性肿瘤的0.2%^[3]。其生长缓慢,但可引起疼痛或不同程度的颅骨破坏。发病机制尚不清楚,可能为先天性疾病或者与既往创伤有关^[4],并以额骨和顶骨多见^[5]。本研究回顾分析南京鼓楼医院集团宿迁市人民医院神经外科2010年3月—2016年1月收治的6例颅骨海绵状血管瘤患者的临床资料;并结合文献探讨其临床表现、影像学特征、病理学特点及治疗措施,以提高对本病的认识。

1 资料与方法

1.1 一般资料 本组患者中,男2例,女4例;年龄35~55岁,平均41.7岁;病程1~5年,平均3年1个月。临床主要表现为无痛性包块2例(其中额部及颞部各1例),疼痛性包

块3例(其中额部1例、颞部2例),无明显肿块、仅仅表现为头痛、头昏1例(顶部)。

1.2 影像学检查 6例患者术前均行头颅CT检查,4例行MRI及MRA检查。6例患者的病灶均位于颅盖骨,单发病灶,位于额骨3例、颞骨2例、顶骨1例。头颅CT检查示,病灶周围骨质局限性稀疏,内见栅栏状改变,呈“日光放射征”,膨胀性生长;CT扫描骨窗位见病变呈边缘规则锐利的溶骨性蜂窝状,或日光放射状改变。4例行MRI检查的患者中,病灶表现为T₁WI及T₂WI均呈高信号,其内信号欠均匀,增强扫描呈不均匀强化,边缘强化更明显者3例;T₁WI呈不均匀等信号,T₂WI呈不均匀高信号,不均匀强化者1例;所有患者脑实质内未见明显占位病灶信号影。4例患者行头颅MRA检查示,颅内血管未见明显血管畸形或动脉瘤样等异常改变。典型病例的影像学资料见图1。



A: 术前头颅CT平扫骨窗示,一侵蚀颅骨内板及板障的病灶,呈“日光放射征”; B: 术前头颅CT平扫脑窗示,右顶骨呈膨胀性生长病灶,脑组织未见明显受累; C: 术前MRI轴位T₁WI,病灶呈高信号,其内信号欠均匀; D: 术前MRI轴位T₂WI,病灶呈高信号,其内信号不均匀; E: 术前MRI冠状位T₁WI增强扫描,病灶呈不均匀强化,边缘强化更明显; F: 术后头颅CT骨窗示肿瘤完全切除

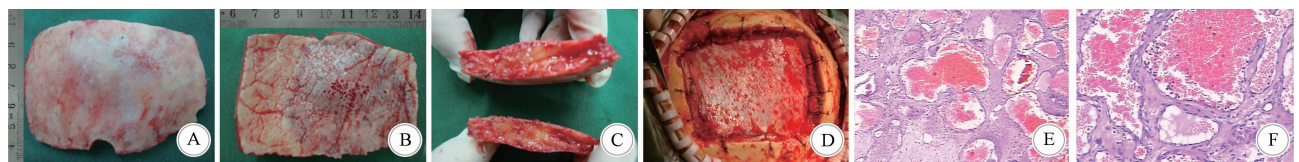
图1 手术前后头颅CT及MRI检查

1.3 治疗方法 6例患者均采取手术治疗,未行放疗。术中掀开皮肌瓣,见局部颅骨外板不同程度破坏,呈紫色改变(图2A);沿病灶周边铣开骨瓣,若周围颅骨仍见有硬化颅骨,继续向周边咬除直到正常骨结构;额窦开放者予抗生素明胶海绵及骨蜡封闭;悬吊硬脑膜后,以二维钛板同期行颅骨修补。

2 结果

2.1 病理学表现 呈暗红色蜂窝状,病灶内大量脂肪组

织,硬脑膜未见明显受累(图2C、D)。术中见颅骨内板受累明显,外板未见明显侵蚀2例(图2A、B);内板无明显受累,外板明显侵蚀2例;内外板均无明显侵犯1例;内外板均有受累1例。病灶均位于骨瓣中央,术后组织病理检查示,肿瘤组织由囊状扩张的血管组成,大部分血管空间被血细胞填充,没有细胞异型性;证实为颅骨海绵状血管瘤(图2E、F)。



A: 术中所见,外板局部呈紫红色改变; B: 术中见内板明显侵蚀,病灶呈暗红色蜂窝状,周边硬化; C: 术中跨肿瘤切开骨瓣见病灶内大量脂肪组织; D: 术中见硬脑膜未见明显受累; E: 术后病理检查示,不同管径的扩张薄壁血管(HE染色,×40); F: 术后病理检查示,管壁为扁平的内皮细胞,充盈血液,较大的管腔壁内平滑肌成分稀少(HE染色,×100)

图2 术中所见及术后病理学检查

2.2 手术效果及随访 本组患者术后CT复查显示,病变完全切除(图1F)。术后均无神经功能障碍,疼痛、头痛、头昏症状消失,恢复良好出院。患者术后2年内每6个月随访1次,随访时间3~26个月,平均15个月;6例患者随访期内均无复发。

3 讨论

血管瘤系由血管组织发生的良性肿瘤,其中80%属先天

性,生长缓慢,很少恶变,组织学上分为毛细血管瘤和海绵状血管瘤。颅骨海绵状血管瘤起源于颅骨板障血管,由颈外动脉分支供血;其中脑膜中动脉和颞浅动脉为主要供血血管。其可发生于颅骨的任何部位,多见于额骨和顶骨^[5];多为单发,多发者罕见^[6];以中年女性多见,男女比约为2~4:1^[7];发病高峰年龄在40~50岁^[5]。

颅骨海绵状血管瘤通常为单个病灶,大多没有任何症状;随着肿瘤的增大,可能表现为头部不活动的肿块,并逐渐出现占位效应,表现为头痛,随着血管瘤增大头痛可能越发明显。由于肿瘤往往外向性生长,故通常没有神经功能缺失。特殊部位的颅骨海绵状血管瘤可有局灶神经功能缺失症状,如位于桥小脑角、颅底^[2]等部位的肿瘤。刘佳等^[8]报道 1 例肿瘤位于中颅凹底的患者表现为视力改变及突眼。本组患者的主要临床表现为头痛、头昏,或颅骨肿块。通过手术切除病灶后,患者头痛、头晕症状及颅骨肿块消失,而且术后随访没有再发。颅骨海绵状血管瘤可因自发性或轻微外伤导致血管破裂而形成硬膜外血肿^[9]。

颅骨影像学检查通常表现为单发肿块,呈“日光放射征”改变,周边骨质硬化^[3];其与颅骨被肿瘤破坏后,新生骨形成,反应性骨小梁呈放射状排列有关^[10]。本组患者同样可见这种特征性改变(图 1A-E)。这一特征在 CT 上表现明显,骨皮质变薄,但骨膜完整,可与骨肉瘤相鉴别;后者破坏骨皮质并累及骨膜及周围软组织;矢状位和轴位可见“蜂窝征”或“皂泡征”^[1]。大多数情况下颅骨外板都有肿瘤侵犯^[11]。MRI 检查肿瘤表现为 T₁WI 呈不均匀低-中等信号, T₂WI 呈不均匀高信号,增强扫描呈不均匀强化^[12]。本研究 6 例患者的 MRI 表现有所不同,其肿瘤 T₁WI 多呈高信号;这可能与颅骨肿瘤内相当部分红骨髓被黄骨髓取代,脂肪组织增多有关。这一点在术中所见也得到证实(图 2C)。肿瘤在 T₂WI 呈高信号与其内血流缓慢或充满血液有关。头颅 MRA 检查可以了解血管瘤与正常血管之间的解剖关系。较大的颅骨海绵状血管瘤血管造影通常表现为一团富含血管的肿块,供血动脉延迟显影,没有引流静脉。

通过“日光放射征”“蜂窝征”等影像学表现,以及血管造影对较大的颅骨原发性海绵状血管瘤可以在术前作出诊断;但对于较小的肿瘤术前诊断就不那么容易,通常需要术后病理检查才能最终确诊。

颅骨海绵状血管瘤的病理学表现为,肿瘤边界清楚,没有包膜,向周边颅骨浸润,切面呈蜂窝状。显微镜下可见大片相互吻合、大小不一的静脉窦或腔隙,血管之间的距离长短不一,窦壁衬有菲薄的内皮细胞层,有时可见血栓形成或钙化现象^[2];外围则由分布不均、排列紊乱的疏松胶原纤维和少量平滑肌细胞组成的厚壁包绕;腔隙由纤维结缔组织分离。

颅骨海绵状血管瘤不可能自愈,如果任其发展可能导致重要神经受损,头晕、头痛等症状长期不能缓解;更有甚者出现硬膜外、硬膜下血肿,而危及患者生命^[13]。大多数学者建议将包括肿瘤在内的被侵蚀的颅骨完整切除,而且其周围已硬化的骨组织也应一并切除,同期颅骨修补,以解除占位效应、解放受压的重要神经以及改善面容,并通过对切除的组织进行病理检查可获得确诊。这样不但可以减少术中出血,还可将术后复发率降到最低。本组患者通过手术治疗均获得良好的效果。对于额颞顶枕骨的海绵状血管瘤可以较顺利地实施这一手术治疗策略,但对于颅底、斜坡等部位的海绵状血管瘤手术治疗有一定的困难。这些特殊部位的肿瘤往往需要娴熟的显微外科技术才能成功切除。刘佳等^[8]报

道的病例中 1 例患者的肿瘤位于颅底,病变大部分磨除后效果良好,未进一步放疗,随访期内未见明显复发。也有学者报道,对颅骨海绵状血管瘤进行栓塞,并刮除包括颅骨内板在内的肿瘤组织,而保留颅骨外板,预后良好^[14]。对于无法手术切除或术后肿瘤残留者,放疗也是一种可供选择的措施。但反对者认为放疗后可能在局部形成瘢痕或者影响临近神经功能,如垂体功能低下,甚至诱发血管瘤恶变^[15]。除此之外,放射治疗还可能引起身体其他部位癌变,如乳腺癌、甲状腺癌、胶质瘤等。鉴于颅骨海绵状血管瘤生长比较缓慢,对于手术有困难者,可采取保守治疗;但在保守治疗过程中应注意观察随访,若病变有明显进展,可以考虑行放射治疗。

[参 考 文 献]

- [1] Naama O, Gazzaz M, Akhaddar A, et al. Cavernous hemangioma of the skull; 3 case reports [J]. *Surg Neurol*, 2008, 70: 654.
- [2] Salunke P, Sinha R, Khandelwal NK, et al. Primary intraosseous cavernous hemangioma of the skull base [J]. *Br J Neurosurg*, 2010, 24: 84.
- [3] Politi M, Romeike BF, Papadagioutou P, et al. Intraosseous hemangioma of the skull with dural tail sign: Radiologic features with pathologic correlation [J]. *Am J Neuroradiol*, 2005, 26: 2049.
- [4] Brackup AH, Haller ML, Danber MM. Hemangioma of the bony orbit [J]. *Am J Ophthalmol*, 1980, 90: 258.
- [5] Heckl S, Aschoff A, Kunze S. Cavernomas of the skull; review of the literature 1975—2000 [J]. *Neurosurg Rev*, 2002, 25: 56; discussion 66.
- [6] 吴海涛, 王立兴. 多发颅骨海绵状血管瘤 1 例 [J]. *中国中西医结合影像学杂志*, 2015, 13: 114.
- [7] Vural M, Acikalin MF, Adapinar B, et al. Congenital cavernous hemangioma of the calvaria. Case report [J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2009, 3: 41.
- [8] 刘佳, 刘仁忠, 陈谦学, 等. 颅骨海绵状血管瘤九例临床分析 [J]. *中华外科杂志*, 2014, 52: 797.
- [9] Buhl R, Barth H, Dörner L, et al. De novo development of intraosseous cavernous hemangioma [J]. *J Clin Neurosci*, 2007, 14: 289.
- [10] Yucel E, Akkaya H, Gurkanlar D, et al. Congenital cavernous hemangioma of the skull [J]. *Turk Neurosurg* 2011, 21: 645.
- [11] Koulouris G, Rao P. Multiple congenital cranial hemangiomas [J]. *Skeletal Radiol*, 2005, 34: 485.
- [12] Woertler K. Benign bone tumors and tumor-like lesions; value of cross-sectional imaging [J]. *Eur Radiol*, 2003, 13: 1820.
- [13] Gottfried ON, Wm G, Schmidt MH. Cavernous hemangioma of the skull presenting with subdural hematoma. Case report [J]. *Neurosurg Focus*, 2004, 17: 1.
- [14] Nasrallah IM, Hayek R, Duhaime A, et al. Cavernous hemangioma of the skull; surgical treatment without craniectomy. Case report [J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2009, 4: 575.
- [15] Ramdasi R, Mahore A, Thorve S, et al. Intradiploic cavernous hemangioma presenting as multiple craters on skull [J]. *Acta Neurochir (Wien)*, 2016, 158: 729.

(收稿 2018-04-30 修回 2018-08-22)