



电子、语音版

· 临床研究 ·

颅内多发动脉瘤合并颅底脑膜瘤 1 例报告并文献复习

汪乐生, 熊忠伟, 吴小林, 陈劲草, 杨邦坤
武汉大学中南医院神经外科, 湖北 武汉 430071

摘要: 颅内多发动脉瘤合并脑膜瘤在临床上较为少见。该文报道 1 例颅内多发动脉瘤合并颅底脑膜瘤患者的临床资料及治疗过程, 并结合相关文献进行探讨。 [国际神经病学神经外科学杂志, 2023, 50(4): 44-49]

关键词: 颅内多发动脉瘤; 脑膜瘤; 夹闭

中图分类号: R739.45

DOI: 10.16636/j.cnki.jinn.1673-2642.2023.04.008

Multiple intracranial aneurysms with skull-base meningioma: A case report and literature review

WANG Lesheng, XIONG Zhongwei, WU Xiaolin, CHEN Jincao, YANG Bangkun
Department of Neurosurgery, Zhongnan Hospital of Wuhan University, Wuhan, Hubei 430071, China
Corresponding author: YANG Bangkun, Email: bangkunyang@whu.edu.cn.

Abstract: Multiple intracranial aneurysms with meningioma is rare in clinical practice. This article reports the clinical data and treatment of a patient with multiple intracranial aneurysms and skull-base meningioma and reviews related articles.

[Journal of International Neurology and Neurosurgery, 2023, 50(4): 44-49]

Keywords: multiple intracranial aneurysms; meningioma; clipping

1 临床资料

患者,男,38岁,因“头痛6d”入院。入院前在当地医院就诊,颅脑磁共振成像(MRI)提示前颅窝占位性病变,初步诊断为“脑膜瘤”,遂转诊至我院。患者于6d前突然出现头痛,呈持续性胀痛,无肢体麻木和抽搐等其他症状。查体:神志清楚,双侧瞳孔等大等圆,直径约2.5mm,光反射灵敏;颈软,双肺呼吸音清,心脏听诊未闻及明显杂音,腹部平软;四级肌力、肌张力基本正常,生理反射存在,病理征未引出。入院后行颅脑CT示:额部大脑镰处类圆形肿物(大小约36.5mm×31.8mm)(图1A)。MRI示:额部大脑镰脑膜瘤伴前颅底脑膜瘤(大小约41mm×31mm)(图1B~1F)。磁共振血管成像(MRA)示:前交通动脉及右侧大脑前动脉A2段多发动脉瘤(图2A)。进一步行数字减影血管造影(DSA)示:前交通动脉瘤、右侧大脑前A2段动脉瘤、A3段动脉瘤,三维DSA示肿瘤邻近动

脉瘤(图2B~2F)。

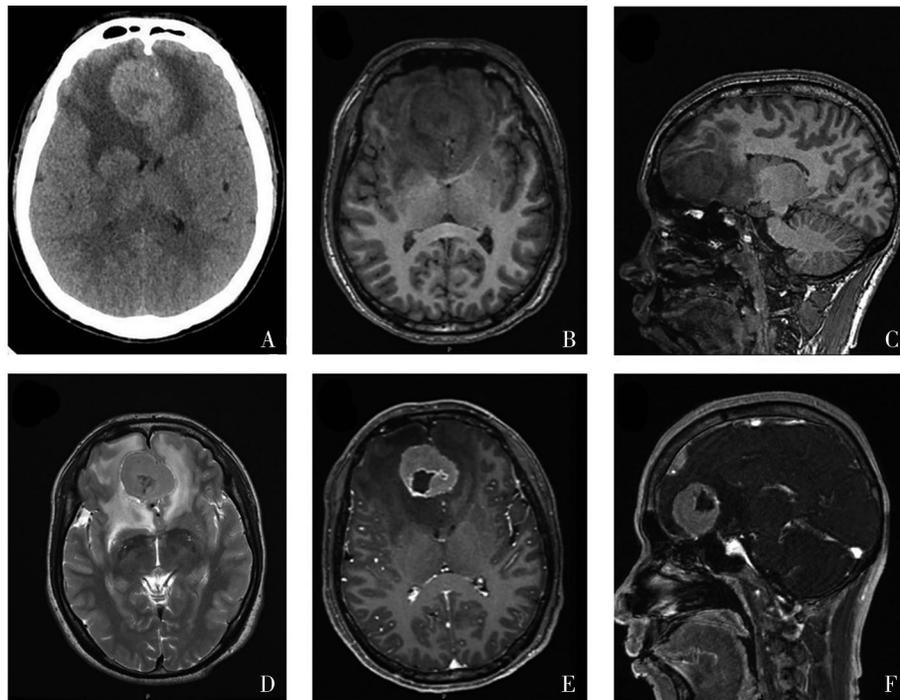
诊断明确后,经与患者及家属沟通,家属同意在同期手术下治疗多发颅内动脉瘤和脑膜瘤。患者在静吸全身麻醉下进行手术,取右侧半冠状手术入路,依次切开皮肤、皮下、剥离骨膜、分离部分颞肌,暴露颅骨,显露硬脑膜,悬吊硬脑膜后放射状剪开硬脑膜,硬脑膜翻向四周,显露脑组织,轻抬额底。经纵裂入路,于大脑镰旁见大小约1cm肿瘤,随后轻抬中线附近额叶显露前颅底肿瘤,见肿瘤附着于前颅底及大脑镰处(图3A),沿肿瘤包膜游离肿瘤,完整切除颅底肿瘤。轻抬额叶显露右侧额底及大脑前动脉A1段(图3B),沿纵裂方向显露双侧A2段及前交通动脉,于前交通动脉处、A2段起始部及A3段起始部各见一动脉瘤,大小分别为:4mm×6mm、2mm×2mm和4mm×2mm。临时动脉瘤夹阻断A1后,充分游离瘤颈,分别夹闭前交通动脉瘤、大脑前A2段和A3段动脉瘤

基金项目:湖北省自然科学基金计划项目(2020CFB728)。

收稿日期:2022-02-21;修回日期:2022-10-14

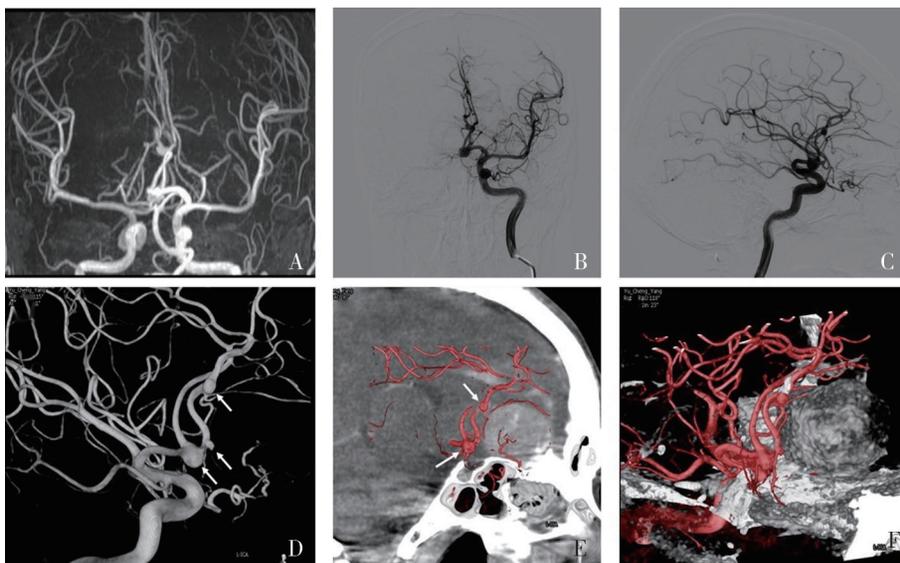
作者简介:汪乐生(1994—),男,汉族,博士在读,主要从事脑肿瘤和脑血管病方面基础和临床研究。Email: 1763541656@qq.com。

通信作者:杨邦坤(1981—),男,汉族,副主任医师,博士,主要从事脑肿瘤和脑血管病基础和临床研究。Email: bangkunyang@whu.edu.cn。



A: 额部大脑镰处可见一类圆形稍高密度影,最大截面积约 $36.5\text{ mm} \times 31.8\text{ mm}$,周围可见水肿带;B~D:额部大脑镰可见大小约 $41\text{ mm} \times 31\text{ mm}$ 等T1等T2信号肿物,边界尚清,周围可见脑脊液裂隙征,邻近双侧额叶脑实质内见大片状水肿高信号;E、F:额部大脑镰肿块可见明显欠均匀强化,中心可见片状未强化区。

图1 术前患者的颅脑CT及MRI



A: 前交通动脉及右侧大脑前动脉A2段可见囊袋状突起,大小分别约为 $7\text{ mm} \times 6\text{ mm}$ 、 $4\text{ mm} \times 3\text{ mm}$;B~D:前交通动脉动脉瘤($4.89\text{ mm} \times 6.39\text{ mm}$)、右侧A2动脉瘤($2.69\text{ mm} \times 2.11\text{ mm}$)、右侧A3动脉瘤($4.83\text{ mm} \times 2.97\text{ mm}$);E、F:三维DSA的融合图像显示脑膜瘤与动脉瘤邻近,且部分分支血管受压;箭头示病变部位。

图2 术前患者的颅脑MRA和DSA检查

(图3C),然后行吲哚菁绿(Indocyanine, ICG)荧光造影,结果显示动脉瘤均未显影,A1及双侧A2动脉显影

流畅,最后行右侧镰旁脑膜瘤切除术,全切肿瘤(图3D)。

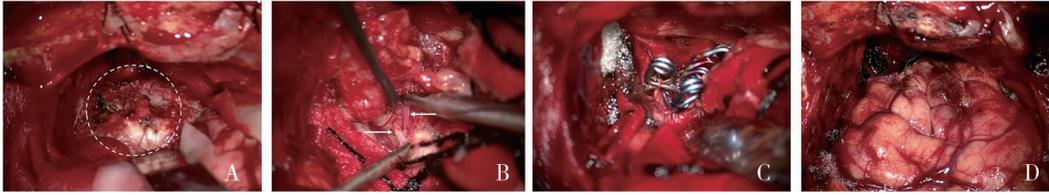


图3 手术过程
A: 显露前颅底肿瘤,见肿瘤附着于前颅底及大脑镰处(白色圈示肿瘤部位); B: 肿瘤包绕大脑前动脉(箭头示血管); C: 临时动脉瘤夹阻断A1后,充分游离瘤颈后,前交通动脉瘤予以FT744、FT644、744T、日本动脉瘤夹成功关闭,A2段动脉瘤予以FT710动脉瘤夹成功关闭,A3段动脉瘤予以FT724动脉瘤夹成功关闭; D: 术野无任何明显出血。

图3 手术过程

术后给予止痛、预防血管痉挛、抗癫痫、预防感染等对症治疗。病理结果提示:(镰旁脑膜瘤切除标本)脑膜瘤(内皮型,WHO I级);(颅底脑膜瘤切除标本)脑膜瘤(内皮型,WHO I级)。术后第3天复查颅脑CT示:脑膜

瘤切除彻底,未见病变残留(图4A)。术后第9天增强MRI示:较术前无明显占位效应(图4B、4C)。头部计算机断层血管成像(CTA)示:动脉瘤夹闭完全(图4D、4E)。

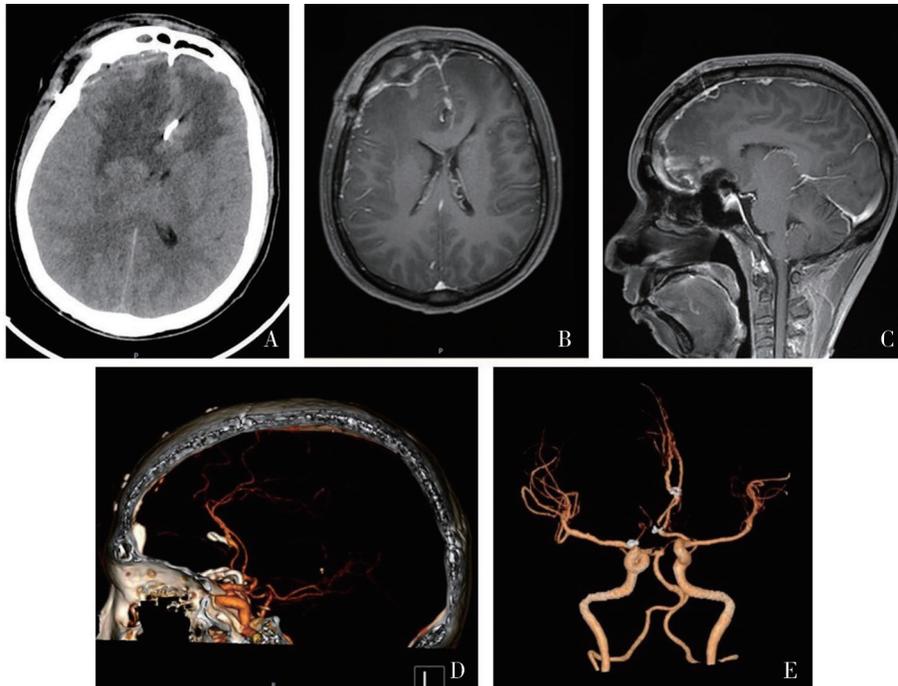


图4 术后复查影像
A: CT示额部脑膜瘤完全消失,无明显占位效应; B、C: 增强MRI未见肿瘤残留; D、E: 动脉瘤未见显影,夹闭满意。

图4 术后复查影像

2 讨论

脑肿瘤合并颅内动脉瘤的发病率为2.3%~7.7%^[1-2]。据既往文献报道,合并颅内动脉瘤的脑肿瘤包括脑膜瘤^[3-4]、胶质瘤^[5-6]、垂体瘤^[1,7]、蛛网膜囊肿^[8-9]、颅咽管瘤^[10-11]等,其中以脑膜瘤最常见,其次为垂体瘤。目前,该类疾病的发病机制尚不清楚,尚无相关研究证实脑肿瘤与动脉瘤之间的明确联系。同时,两种病变共存的治疗策略也尚未确定。

分别以“脑膜瘤”“颅内动脉瘤”为关键词检索中国知网、万方数据库,同时以“*Intracranial Aneurysm*”、“*Meningioma*”、“*coexistence*”为关键词搜索PubMed数据

库,检索2022年7月之前符合颅内多发动脉瘤合并脑膜瘤的文献,最终纳入8篇文献(见表1)^[12-19]。所有文献共纳入9例患者,女性8例(88.9%),所有患者均表现为脑膜瘤诱发的症状,脑膜瘤处理方式以手术切除为主,动脉瘤以手术夹闭为主。术后患者预后均良好,无严重神经功能障碍。

Oh等^[1]通过检索相关文献,分析了24篇相关文献,包含77名患者。其中女性占59例(76.6%),男女比为1:3.27。平均年龄为54.74岁,发病高峰期50~55岁。大多数病变位于同侧,且大多数动脉瘤位于颈内动脉。一半以上的患者只存在肿瘤诱发的相关症状,只有25%的

患者发生蛛网膜下腔出血。关于脑膜瘤所在的部位,额叶最为常见,包括额旁矢状窦、额底、额极和额颞叶。这些结论与Fischer等之前的研究结果高度相似^[20]。本研究中患者以头痛症状为主,结合影像学结果,笔者推测该患者的临床症状是由脑膜瘤占位效应所引起,这与Oh等的研究结论基本相同。

脑膜瘤与颅内动脉瘤的发生之间关系尚不明确。目前存在几个假说来解释肿瘤和动脉瘤之间的关系,但均未得到明确的证实。

由于动脉瘤与肿瘤供血动脉的位置邻近,并且病变位于大脑半球的同一侧,肿瘤的局部占位效应和供血增加引起局部血流量增加,这些定向血流会引发血管壁的继发性改变,继而促进动脉瘤的形成^[21]。这一假说得到Tachikawa等^[22]的印证,他们报告了1例患有筛前动脉瘤的患者,为前颅窝脑膜瘤供血。在脑膜瘤切除后,动脉瘤消失。

女性患者在脑膜瘤和颅内动脉瘤方面的发病率高于男性,其中的原因可能在于,激素或许介导两种疾病的共同发生和发展。这个假说同时支持了流行病学中的调查结果,即女性多于男性。这或许与女性体内雌激素的动态变化有关。雌激素具有调控血管发生发育、网络形成等功能。当女性年龄增大,往往伴随有雌激素水平的下降,此时女性的颅内血管内皮细胞的修复能力明显减弱,因此发生动脉瘤的可能性增加。其他相关的文献报道支持了可能由激素介导两种疾病同时存在的假设^[23-24]。

此外,对于这两种疾病的基因缺陷也有相关文献报道。在1p36.2-p34、11q13和17p13.1相同的基因位点上发现了这两种疾病的一些突变或基因表达的缺失^[25-26]。这些部位存在负责调节细胞周期(*TP73*、*TP53*)和细胞结构完整性(*EPB1*)的基因。基因突变或基因表达缺失可能诱发动脉瘤和脑膜瘤两种病变的共存,但直到现在仍缺乏相关的基础研究。

目前为止,与脑肿瘤相关的颅内动脉瘤形成的确切

机制仍不清楚。除了以上所提出的假说,还包括:高脆性肿瘤血管^[27]、血流动力学改变^[28]、生长因子过量分泌^[29]以及新生血管的肿瘤侵袭^[30]。这些因素可能促进肿瘤相关性动脉瘤的形成。

关于脑膜瘤合并颅内动脉瘤的治疗,目前的主流治疗理念包括两种:同期手术和分次手术。脑膜瘤的治疗仍然采用传统的显微外科切除,而颅内动脉瘤可采用显微外科夹闭术或介入栓塞术。动脉瘤的治疗需根据动脉瘤的部位、大小,患者的身体状况,家属的意愿等多方面综合考虑。在动脉瘤手术方式的选择方面,目前尚无证据表明两种干预方式的优劣。Niu等^[31]对50例动脉瘤合并胶质瘤患者进行手术治疗,27名患者进行显微外科夹闭术,12名患者进行介入栓塞术。结果显示,动脉瘤的不同治疗方式对患者的总生存期并无差异。在本病例中,笔者采用了显微外科夹闭的方式,患者的短期预后取得了一定的成效,且无明显的手术并发症。

对于位于同侧(或病变邻近)且同一手术入路可处理两种病变的情况下,可采用同期手术的方式,应当先处理动脉瘤,而后切除脑膜瘤。对于异侧的病变,应当根据病变的危险性、患者的基本情况,采用分期手术来分别处理病变,建议先处理动脉瘤,然后再处理脑膜瘤^[32]。在此病例中,由于脑膜瘤位于动脉瘤的上方,且部分血管被肿瘤包裹,此时若夹闭动脉瘤必须先切除脑膜瘤。虽然在先切除脑膜瘤的情况下,可能会导致动脉瘤周围压力的改变或组织牵拉导致动脉瘤破裂^[33],但本案例的手术视野在肿瘤干扰下无法彻底暴露动脉瘤,因此需先切除额叶脑膜瘤。

综上所述,位于前颅底的脑膜瘤与周围的动脉解剖关系密切可能会诱发颅内动脉瘤。根据患者的身体状况、影像学资料、病变相对位置等情况,同一手术入路同期手术(即脑膜瘤切除术联合动脉瘤夹闭术)处理邻近部位的颅内动脉瘤合并脑膜瘤是安全有效的,减少了患者二次手术的创伤,也大幅缩短了患者术后康复的时间。

表1 颅内多发动脉瘤合并脑膜瘤文献总结

作者,发表年份	性别	年龄	症状	部位		治疗方式			预后
				脑膜瘤	动脉瘤	脑膜瘤	动脉瘤	是否同期处理	
Ding, et al. 2021 ^[12]	女	46	头痛、头晕	右侧蝶骨嵴	左侧眼动脉段和右侧后交通	手术切除	夹闭	是	良好
Papadimitriou, et al. 2020 ^[13]	女	55	癫痫	大脑镰	左侧胼周动脉、前交通动脉、右侧额极动脉	手术切除	介入栓塞	否	良好
Takeda, et al. 2017 ^[14]	女	58	左侧视力下降	矢状窦旁	左侧颈内动脉破裂孔段、脑膜中动脉	手术切除	线圈辅助支架	否	良好
Paraskevopoulos, et al. 2011 ^[15]	女	55	眩晕	左侧前床突	右侧大脑中、左侧大脑前动脉	手术切除	夹闭	否	良好

续表1

作者,发表年份	性别	年龄	症状	部位		治疗方式			预后
				脑膜瘤	动脉瘤	脑膜瘤	动脉瘤	是否同期处理	
Yokoi, et al. 1987 ^[16]	男	50	头痛伴视力障碍	左侧枕部	右侧大脑前动脉、基底动脉	手术切除	未知	否	良好
Okamura, et al. 1981 ^[17]	女	33	癫痫	大脑镰	右侧眼动脉段、后交通动脉瘤	手术切除	未知	否	良好
张永豪,等. 2021 ^[18]	女	64	右眼视物模糊	鞍上	右侧大脑前动脉A1段、右侧大脑中动脉M1与M2分叉	手术切除	夹闭	是	良好
赵冬,等. 2012 ^[19]	女	69	头痛	左侧顶部	左侧后交通、眼动脉动脉瘤	手术切除	夹闭	是	良好
本文病例	男	38	头痛	大脑镰、前颅底	前交通、右侧大脑前A2段、A3段动脉瘤	手术切除	夹闭	是	良好

参 考 文 献

- [1] OH MC, KIM EH, KIM SH. Coexistence of intracranial aneurysm in 800 patients with surgically confirmed pituitary adenoma[J]. J Neurosurg, 2012, 116(5): 942-947.
- [2] PARK KY, KIM BM, KIM DJ. Preoperative coiling of coexisting intracranial aneurysm and subsequent brain tumor surgery[J]. Korean J Radiol, 2016, 17(6): 931-939.
- [3] DE SOUZA MR, FAGUNDES CF, RABELO NN, et al. Association between intracranial aneurysm and meningiomas: an integrative survival analysis with identification of prognostic factors[J]. Clin Neurol Neurosurg, 2020, 198: 106128.
- [4] JAVALKAR V, GUTHIKONDA B, VANNEEMREDDY P, et al. Association of meningioma and intracranial aneurysms: report of five cases and review of literature[J]. Neurol India, 2009, 57(6): 772-776.
- [5] CHAMBERLAIN MC. Co-existence of glioblastoma and cerebral aneurysm[J]. CNS Oncol, 2016, 5(1): 9-10.
- [6] ENE CI, NERVA JD, MCGRATH L, et al. Flow-related aneurysm within glioblastoma: a case report and review of literature[J]. World Neurosurg, 2016, 89: 729.e1-729.e6.
- [7] HU JT, LIN ZC, ZHANG Y, et al. Prevalence of unruptured intracranial aneurysms coexisting with pituitary adenomas[J]. World Neurosurg, 2019, 126: e526-e533.
- [8] AGUIAR GBD, SANTOS RGD, PAIVA ALC, et al. Intracranial aneurysm and arachnoid cyst: just a coincidence? A case report [J]. Sao Paulo Med J, 2019, 137(1): 92-95.
- [9] IGARASHI Y, MURAI Y, YAMADA O, et al. Cerebral aneurysm associated with an arachnoid cyst: 3 case reports and a systematic review of the literature[J]. World Neurosurg, 2018, 109: e203-e209.
- [10] QIAN H, WANG L, BROOKS KS, et al. Intraoperative finding of an anterior communicating artery blister-like aneurysm during a primary craniopharyngioma resection: accidental or incidental [J]. World Neurosurg, 2019, 127: 514-517.
- [11] TAKEUCHI S, WADA K, SAKAKIBARA F, et al. Anterior cerebral artery dissecting aneurysm associated with untreated craniopharyngioma[J]. Br J Neurosurg, 2013, 27(1): 102-104.
- [12] DING C, CHEN W, HU YJ, et al. Bilateral aneurysms, one of which is embedded in a meningioma: a rare case report and literature review[J]. Br J Neurosurg, 2021: 1-6.
- [13] PAPANIMITRIOU K, ROCCA A, DUNET V, et al. Feeding artery aneurysms associated with large meningiomas: case report and review of the literature[J]. Heliyon, 2020, 6(5): e04071.
- [14] TAKEDA NY, NISHIHARA M, YAMANISHI S, et al. Strategy for patients with co-existence of meningioma and intracerebral aneurysm, especially unruptured aneurysm (-seven cases and review of the literature-)[J]. J Clin Neurosci, 2017, 45: 236-242.
- [15] PARASKEVOPOULOS D, MAGRAS I, BALOGIANNIS I, et al. Anterior clinoidal meningioma coincidental with bilateral intracranial aneurysms[J]. Hippokratia, 2011, 15(4): 353-355.
- [16] YOKOI K, KANNO T, NONOMURA K, et al. [Intracranial cystic meningioma associated with multiple aneurysms and venous angioma. Case report] [J]. Neurol Med Chir (Tokyo), 1987, 27(12): 1180-1184.
- [17] OKAMURA T, WATANABE Y, KAMEDA H, et al. [Coexistence of brain tumors and cerebral aneurysms-clinical considerations from eight cases- (author's transl)] [J]. Neurol Med Chir (Tokyo), 1981, 21(6): 601-608.
- [18] 张永豪,杜思凝,高佳堆,等. MRI联合3DCTA诊断鞍上脑膜瘤合并颅内多发动脉瘤1例[J]. 中国实验诊断学, 2021, 25(4): 597-598.
- [19] 赵冬,刘祺,许晖,等. 一次手术夹闭颅内多发动脉瘤并切除脑膜瘤[J]. 中华神经外科杂志, 2012, 28(3): 228.
- [20] FISCHER BR, PALKOVIC S, HOLLING M, et al. Coexistence of cerebral aneurysm and meningioma--pure accident[J]. Clin Neurol Neurosurg, 2009, 111(8): 647-654.
- [21] PIA HW, OBRADOR S, MARTIN JG. Association of brain tumours and arterial intracranial aneurysms[J]. Acta Neurochir (Wien), 1972, 27(3): 189-204.
- [22] TACHIKAWA TC, ADACHI JI, NISHIKAWA R, et al. An anterior ethmoidal artery aneurysm associated with an olfactory groove meningioma[J]. J Neurosurg, 2002, 97(6): 1479.
- [23] PRAVDENKOVA S, AL-MEFTY O, SAWYER J, et al. Progesterone and estrogen receptors: opposing prognostic

- indicators in meningiomas[J]. J Neurosurg, 2006, 105(2): 163-173.
- [24] PANT B, ARITA K, KURISU K, et al. Incidence of intracranial aneurysm associated with pituitary adenoma[J]. Neurosurg Rev, 1997, 20(1): 13-17.
- [25] NAHED BV, BYDON M, OZTURK AK, et al. Genetics of intracranial aneurysms[J]. Neurosurgery, 2007, 60(2): 213-225.
- [26] SIMON M, BOSTRÖM JP, HARTMANN C. Molecular genetics of meningiomas: from basic research to potential clinical applications[J]. Neurosurgery, 2007, 60(5): 787-798.
- [27] JUNG S, MOON KS, JUNG TY, et al. Possible pathophysiological role of vascular endothelial growth factor (VEGF) and matrix metalloproteinases (MMPs) in metastatic brain tumor-associated intracerebral hemorrhage[J]. J Neurooncol, 2006, 76(3): 257-263.
- [28] SASAGAWA YS, AKAI TKA, ITOU S, et al. *de novo* aneurysm in the feeding artery of a recurrent malignant glioma[J]. Neurol Med Chir (Tokyo), 2011, 51(4): 306-310.
- [29] CHARALAMBOUS C, HOFMAN FM, CHEN TC. Functional and phenotypic differences between glioblastoma multiforme-derived and normal human brain endothelial cells[J]. J Neurosurg, 2005, 102(4): 699-705.
- [30] HASHIGUCHI A, MORIOKA M, ICHIMURA H, et al. Glioblastoma with an intratumoral feeding-artery aneurysm[J]. Clin Neurol Neurosurg, 2007, 109(3): 302-304.
- [31] NIU XD, WANG TW, LI J, et al. An integrative survival analysis with identification of prognostic factors in the patients with coexisting glioma and intracranial aneurysm[J]. World Neurosurg, 2018, 111: e592-e600.
- [32] 彭海涛,徐锋,徐斌. 巨大床突旁动脉瘤合并凸面脑膜瘤1例报告并文献复习[J]. 临床神经外科杂志, 2018, 15(6): 432-435.
- [33] 焦建同,孙骏,程超,等. 血管内介入栓塞合并有颅内肿瘤的动脉瘤的疗效分析[J]. 临床神经外科杂志, 2019, 16(5): 386-389.

责任编辑:王荣兵