症例報告

鼻側半盲を呈した鞍上部異所性下垂体腺腫の 1 例

佐々木 輝 夫 荒井 啓 史 阿部 深 雪 上 杉 憲 幸*
菅 井 保* 小笠原 邦 昭 中 村 眞 一* 小 川 彰

Suprasellar Ectopic Pituitary Adenoma presented with Nasal Hemianopia: A Case Report

by

Teruo Sasaki, M.D., Hiroshi Arai, M.D., Miyuki Abe, M.D., Noriyuki Uesugi, M.D.*,
Tamotsu Sugai, M.D.*, Kuniaki Ogasawara, M.D., Shin-ichi Nakamura, M.D.*, and Akira Ogawa, M.D.

from

Department of Neurosurgery and *Division of Pathology, Central Clinical Laboratory,
Iwate Medical University

The case of a 40-year-old man with suprasellar ectopic pituitary adenoma is reported. He was referred to us with nasal hemianopia of left eye. Plain skull X-ray demonstrated saucer-like deformation of the sella turcica, but no ballooning of the tuberculum sellae. MR images revealed a suprasellar tumor under a left optic nerve and a normal pituitary gland in the pituitary fossa below the tumor. Intraoperative examination showed the tumor had not invaded the pituitary gland or pituitary stalk. However, slight attachment to the diaphragma sellae was observed. Gross total removal of the tumor was accomplished. Histologically, the tumor was identified as a pituitary adenoma. Postoperative findings on laboratory studies were normal, and follow-up MR images demonstrated the normal pituitary gland in the pituitary fossa.

(Received May 27, 2002; accepted September 13, 2002)

Key words : suprasellar, ectopic, pituitary adenoma

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 12 : 124-128, 2003

はじめに

異所性下垂体腺腫はまれな疾患であるが、近年の MRI の普及により、報告が増えている。発生部位別では蝶形骨洞内が最多であり、鞍上部発生例については、本症例を含めて 19 例の報告がある^{1)~18)}。その初発症状の多くは視力障害であり^{6)8)10)14)~17)19)}、視野障害を呈する症例は全例耳側半盲であった^{8)10)14)~17)}。

今回われわれは左眼の鼻側半盲を認めた鞍上部異所性下垂体腺腫の 1 例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症例呈示

患 者：40 歳，男性

主 訴：左眼の視力低下

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：10 年前より徐々に進行する左眼の視力低下を自覚しており、近医を受診した。頭部 MRI にて鞍上部に腫瘤を認め、当院に紹介された。

入院時所見：左眼視力障害（裸眼視力 0.2）および左眼鼻側半盲を認めたが（Fig. 1）、その他の神経学的脱落症状を認めなかった。

内分泌学的所見：血清プロラクチン（PRL）基礎値は

岩手医科大学脳神経外科／〒020-8505 岩手県盛岡市内丸 19-1〔連絡先：佐々木輝夫〕

Address reprint requests to: Teruo Sasaki, M.D., Department of Neurosurgery, Iwate Medical University, 19-1 Uchimaru, Morioka-shi, Iwate 020-8505, Japan

*同臨床病理

▲Fig. 1 Visual field examination on admission shows the nasal hemianopia of left eye.

▶Fig. 2 Plain skull X-ray reveals saucer-like sella turcica.

56.8 ng/ml (正常値男性: 3.0~19.5 ng/ml) と軽度上昇を認めた。その他の下垂体前葉ホルモンは、甲状腺刺激ホルモン (TSH) 0.94 μ IU/ml, 成長ホルモン (GH) 0.05 以下 ng/ml, 卵胞刺激ホルモン (FSH) 3.0 mIU/ml, 黄体形成ホルモン (LH) 2.3 mIU/ml, 副腎皮質刺激ホルモン (ACTH) 38 pg/ml であった。TRH (500 μ g), LHRH (100 μ g) およびインスリン (6 単位) の三者同時負荷における項値は, PRL 85.8 ng/ml, TSH 10.08 μ IU/ml, GH 2.5 ng/ml, FSH 7.3 mIU/ml, LH 16.7 mIU/ml, ACTH 31.3 pg/ml と基礎値, 項値とも正常範囲内であった。

画像所見: 頭部単純 X 線撮影では, トルコ鞍の平皿状の変化を示した (Fig. 2)。頭部 MRI coronal 像では, 鞍上部の腫瘍は T1 強調画像で等信号, T2 強調画像で等～やや高信号を示し, Gd-DTPA で不均一に増強された (Fig. 3A)。同 sagittal 像では, 腫瘍下方のトルコ鞍内に境界明瞭な正常下垂体を認め, 下垂体との非連続性病変が示唆された (Fig. 3B)。また腫瘍上方から左側脳室にかけて, 嚢胞様の構造物を認めた。脳血管撮影では, 左中大脳動脈 M1 部が挙上していたが, 腫瘍陰影はなかった。術前診断として頭蓋咽頭腫, 髄膜腫などを考慮し, 手術を施行した。

手術所見: 手術は左前頭側頭開頭, trans-sylvian approach で行った。腫瘍は Heubner 動脈, 前大脳動脈 A1 部, 前脈絡叢動脈, 後交通動脈とその穿通枝を巻き込み, 左視神経を外側より圧排していた。腫瘍と下垂体茎とは境界明瞭であった。また, 腫瘍と鞍隔膜との軽度癒着は認めたが, トルコ鞍内との連続性はなかった (Fig. 4A, B)。

病理所見: 好酸性の胞体と類円形の核を有する細胞がび漫性に配列しており, 下垂体腺腫の診断であった (Fig.

5A)。免疫組織学的には PRL, GH, FSH, LH, TSH および ACTH はすべて陰性であった。また, MRI 上の嚢胞様病変部のクモ膜組織を, 術中に一部生検した結果, 同部にヘモジデリンの沈着がみられた (Fig. 5B)。

術後経過: 術後の MRI では, 腫瘍は全摘されており, 下垂体茎, 鞍隔膜, 正常下垂体は明瞭に認められた (Fig. 3C, D)。術後の内分泌学的検査では血清 PRL 値は 8.7 ng/ml に低下しており, その他の下垂体前葉機能も保持されていた。

考 察

異所性下垂体腺腫とは, 正常下垂体の位置するトルコ鞍とかけ離れた場所に腺腫が発生したものである。異所性下垂体腺腫は, 本例を含め 41 例の報告がある。近年の MRI の普及により報告が増えている。発生部位別では蝶形骨洞内が最多であり, 鞍上部発生例は本例を含めて 19 例である^{1)~18)}。

鞍上部発生例を“異所性”下垂体腺腫とするかどうかは議論の多いところである。異所性下垂体腺腫の発生原因としては以下の 3 つの可能性が示唆される。1) 胎生期に出現する Rathke's pouch が漏斗に向かって成長する際に, 鼻咽頭部, 蝶形骨洞に残存し, 腺腫となる場合²⁾⁸⁾, 2) 隆起部 (pars tuberalis) に存在する下垂体前葉細胞が腺腫となる場合^{3)~5)7)11)~15)17)}, 3) craniopharyngeal duct が第 3 脳室や他の部位に迷入し, そこから腺腫になる場合である²⁾⁸⁾¹⁰⁾。2) の場合, 正常下垂体との連続性があり, 真の意味での異所性とはいえないという指摘がある。寺本ら¹⁸⁾は下垂体茎周辺のクモ膜に存在する下垂体細胞からの発生に注目し, ここから発生した腺腫のみ

Fig. 3A, B : Preoperative T1-weighted MR images enhanced with Gd-DTPA show heterogeneously enhanced mass in the suprasellar cistern and cystic mass (A), tumor, pituitary stalk, diaphragma sellae and pituitary gland (B).
C, D : Postoperative T1-weighted MR images enhanced with Gd-DTPA show total removal of tumor (C), pituitary stalk, diaphragma sellae, and pituitary gland (D).
A, C : Coronal view B, D : Sagittal view

Fig. 4 Intraoperative photographs demonstrate compressed optic nerve before (A) and intact pituitary stalk after removal of the tumor (B).
T : tumor ICA : internal carotid artery ON : optic nerve PS : pituitary stalk
DS : diaphragma sellae

Fig. 5 Photomicrograms display sinusoidal proliferation of tumor cells (A) (H & E stain, $\times 400$), and the cystic lesion specimen with deposition of hemosiderin in the arachnoid (B). (Berlin Blue, $\times 400$)

を異所性によぶべきであるとした。本例では下垂体茎との癒着はなく、この点においても鞍上部“異所性”下垂体腺腫と考え得るものであった。

鞍上部発生例の症状では視力・視野障害 (10 例) や^{1)6)8)9)14)~17)19)} 鞍隔膜の刺激症状である頭痛 (5 例) が多い³⁾⁶⁾⁹⁾¹⁰⁾¹³⁾。視野検査において耳側半盲を認める例は 6 例であるが^{8)10)14)~17)}、鼻側半盲を呈した症例は本例のみであった。これは鞍上部腫瘍の側方への進展により、視交叉が左側方から圧排されたためと考えられる。

異所性下垂体腺腫においても、機能性腺腫と非機能性腺腫がある。機能性腺腫の鞍上部発生例は、ACTH 産生腫瘍 4 例⁷⁾¹²⁾¹³⁾¹⁸⁾、PRL 産生腫瘍 2 例⁶⁾¹⁰⁾、GH 産生腫瘍 1 例⁶⁾の報告である。PRL 産生腫瘍の 2 例において、術前の内分泌学的検査で、血清 PRL 基礎値は 3,000 ng/ml 以上と高値、負荷試験で低反応であり、術後の免疫組織学的検査では PRL が陽性であった。本例は術前血清 PRL 基礎値の軽度上昇を示したが、これは腫瘍により視床下部、下垂体茎の圧排により、PRL 分泌抑制因子が障害されたためと考えた。

画像所見上、単純 X 線が施行された例では^{3)~10)14)~18)}、全例でトルコ鞍の拡大を認めていない。本例ではトルコ鞍の平皿状変化を示したが (Fig. 2)、これは鞍上部腫瘍の圧排による変化と推測される。MRI では、トルコ鞍内に腫瘍と非連続性の正常下垂体を確認することが、異所性下垂体腺腫の診断上重要な所見と報告されている¹⁴⁾。特に、T1 強調画像における後葉の高信号との位置関係、鞍隔膜の描出などが挙げられる。本例も画像上、従来の報告と同様の所見を示した。また、腫瘍

自体の MRI 像では、12 例中 9 例が実質性腫瘍であった^{6)7)9)~11)13)15)16)18)}。本例のように Gd-DTPA で不均一に造影される例は、9 例中 2 例であった⁹⁾¹⁶⁾。これは腫瘍組織の一部に出血や梗塞が生じたものとされている¹⁶⁾。本例の頭部 MRI で、腫瘍と隣接していた脳内嚢胞様病変では (Fig. 3A)、同病変部の組織像でヘモジデリンの沈着を認めており (Fig. 5B)、これは、明らかな既往はないものの、過去における腫瘍からの脳内出血に伴う変化ではないかと推測される。

また、術後の下垂体前葉機能が保持されることも、異所性下垂体腺腫の criteria として挙げられており¹⁴⁾、この点でも、本例は従来の報告に合致するものであった。

まとめ

左鼻側半盲を呈した鞍上部異所性下垂体腺腫の 1 例を、文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) 秋元治朗, 名倉正利, 小野寺良久: 嚢胞を伴った異所性下垂体腺腫の 1 例. 脳神経 47: 1092-1097, 1995.
- 2) Bonner RA, Mukai K, Oppenheimer JH: Two unusual variants of Nelson's syndrome. *J Clin Endocrinol Metab* 49: 23-29, 1979.
- 3) Cushing H: The chiasmal syndrome. *Arch Ophthalmol* 3: 505-551, 1930.
- 4) Hamada J, Seto H, Miura M, Kuratsu J, Usio Y: Suprasellar pituitary adenoma arising from the pars tuberalis: Case report. *Neurosurgery* 27: 647-649, 1990.
- 5) 岩井謙育, 白馬 明, 勝山淳亮, 永田安徳, 西村周郎, 阿部一清, 朝倉 保, 井上祐一: ectopic large pituitary ade-

- noma の 1 例. 脳外 18: 71-75, 1990.
- 6) Jung S, Kim JH, Kim TS, Lee MC, Seo JJ, Park JW, Kang SS: Supradiaphragmatic ectopic adrenocorticotrophic hormone secreting adenoma. *Pathol Int* 50: 901-904, 2000.
 - 7) Kepes JJ, Fritzlen TJ: Large invasive chromophobe adenoma with a well-preserved pituitary gland. *Neurology (Minneapolis)* 14: 537-541, 1964.
 - 8) Kleinschmidt-DeMasters BK, Winston KR, Rubinstein D, Samuels MH: Ectopic pituitary adenoma of the third ventricle: Case report. *J Neurosurg* 72: 139-142, 1990.
 - 9) Kohno M, Sasaki T, Narita Y, Teramoto A, Takakura K: Suprasellar ectopic pituitary adenoma: Case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 34: 538-542, 1994.
 - 10) Lindboe CF, Unsgard G: ACTH and TSH producing ectopic suprasellar pituitary adenoma of the hypothalamic region: Case report. *Clin Neuropathol* 12: 138-141, 1993.
 - 11) Luk KH, Lam KSL: Suprasellar ectopic pituitary adenoma presenting as cranial diabetes insipidus. *Postgrad Med J* 68: 467-469, 1992.
 - 12) Matsumura A, Meguro K, Doi M: Suprasellar ectopic pituitary adenoma: Case report and review of the literature. *Neurosurgery* 26: 681-685, 1990.
 - 13) Ogilvy KM, Jakubowski J: Intracranial dissemination of pituitary adenomas. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 36: 199-205, 1973.
 - 14) Rothman LM, Sher J, Queneer RM, Tenner MS: Intracranial ectopic adenoma: Case report. *J Neurosurg* 44: 96-99, 1976.
 - 15) Tal A: Cushing's disease caused by ectopic pituitary adenoma within the pituitary stalk. *Southern Med J* 86: 249-250, 1993.
 - 16) 田中敏樹, 渡辺一良, 中州 敏, 半田譲二: 鞍上部に発生した異所性下垂体腺腫の 1 例. 脳外 22: 1141-1145, 1994.
 - 17) Tamaki N, Shirakuni T, Kokunai T, Matumoto S, Fujimori T, Maeda S: Ectopic pituitary adenoma in the suprasellar cistern: Case report. *Surg Neurol* 35: 389-394, 1991.
 - 18) 寺本 明, 高倉公明, 山王直子: Extrasellar null cell adenoma の 1 例. ホルモンと臨床 41: 48-50, 1993.

要 旨

鼻側半盲を呈した鞍上部異所性下垂体腺腫の 1 例

佐々木輝夫 荒井 啓史 阿部 深雪 上杉 憲幸
菅井 保 小笠原邦昭 中村 眞一 小川 彰

鼻側半盲を呈した鞍上部異所性下垂体腺腫の症例を経験した。

症例は 40 歳, 男性で, 左眼の視力低下を主訴に来院した。初診時左眼の鼻側半盲を認めた。頭部単純 X 線ではトルコ鞍の平皿状変化を示し, MRI では鞍上部の腫瘍ならびにそれとの間に明瞭な境界を有する正常下垂体が確認された。術中所見では腫瘍と下垂体茎とは境界明瞭, 腫瘍と鞍隔膜の軽度癒着は認めしたが, トルコ鞍内との連続性はみられなかった。腫瘍は肉眼的に全摘された。病理診断は下垂体腺腫であった。術後の内分泌学的検査では下垂体前葉機能は保持されていた。画像所見, 術中所見, 病理所見および術後の内分泌学的所見から, 鞍上部異所性下垂体腺腫と診断した。

脳外誌 12: 124-128, 2003