若年発生頸椎悪性腫瘍の3例

久留米大学整形外科

田 平 礼 一・永 田 見 生

大 橋 輝 明・井 上 明 生

久留米大学第2病理

平 岡 弘 二

柳川リハビリテーション病院

矢 野 楨 二

Malignant Tumors in the Cervical Spine in Adolescence
—Report of Three Cases—

by

Hirokazu Tabira, Kensei Nagata, Teruaki Ohashi
and Akio InoueDepartment of Orthopedic Surgery, Kurume University,
School of Medicine, Kurume, Japan

Kouji Hiraoka

Department of Second Pathology,
Kurume University School of Medicine

Teiji Yano

Yanagawa Rehabilitation Hospital

We report three cases of young patients with malignant tumors in the cervical spine who underwent decompression surgery.

Case 1. A 16-year-old male was admitted to our hospital with progressive tetraparesis and neck pain. Plain radiographs at C5 showed sclerosis. He underwent subtotal resection of the C5 body with fusion and radiotherapy. The histological diagnosis was Ewing's sarcoma.

Case 2. A 19-year-old female was admitted with bilateral numbness in her upper extremities after a traffic accident. CT findings showed destruction at the C6 body and lamina. She underwent subtotal resection of C6 with anterior and posterior spinal fusion, radiotherapy and chemotherapy. The tentative histological diagnosis at surgery was chordoma. However, the autopsy results showed metastatic thyroid cancer.

Case 3. A 25-year-old male was admitted with severe neck pain and progressive tetraparesis. Plain radiographs and CT findings showed destruction at the C3 body. The spinal cord at C3/4 was compressed by an anterior mass, on MRI. The treatment was similar to that for Case 2. The histological diagnosis was malignant meningioma.

Both Cases 2 and 3 who underwent anterior and posterior spinal fusion, had a post-operative recovery period of 3 to 4 months without ADL disturbance. However all three cases died of multiple lung metastases within 1 year and 7 months after surgery.

Key words : malignant tumor (悪性腫瘍), cervical spine (頸椎), adolescence (青年期)

はじめに

若年者の頸椎に発生する悪性腫瘍は極めてまれで、また若年者ゆえに進行も早く、迅速に診断を行い、適確な治療を進めていくことが必要となる。今回我々は、診断および治療に難渋したまれな若年発生の頸椎悪性腫瘍3例を経験したので、症例の概要を述べ、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

症例1：16歳，男性。

主 訴：四肢脱力感および知覚障害。

現病歴：1981年9月初旬より誘因なく項部痛出現。徐々に四肢脱力感および知覚障害も出現のため、同年11月2日、近医受診したが、更に歩行障害、呼吸困難を認め、同日当科緊急入院となる。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

入院時所見：歩行は痙性失調歩行。上肢では手指巧緻運動障害、C6レベル以下のMMTの低下を認めたが、深部反射は正常であった。また、下肢では両側の深部反射亢進と、病的反射を認めた。知覚障害はC5レベル以下での知覚鈍麻を認め、膀胱直腸障害として排尿困難を訴えた。

X線所見：側面像にてC5椎体部に骨硬化像、C4/5椎間部前方に石灰化像を認めたが、軟部腫瘍陰影および骨膜反応は認めなかった(図1)。

図1 症例1
単純X線および断層撮影像
C₅椎体部に骨硬化像、C_{4/5}椎間部前方に石灰化像を認めた。

Needle biopsyでは確定診断できず、その後麻痺の進行を伴い、入院後1カ月目に前方除圧固定術を施行した。

病理所見：椎体摘出標本の、HE染色では、骨梁間にび慢性に小類円形腫瘍細胞の増殖を認め、またPASジアスターゼ消化試験にて胞体内にグリコーゲンを証明し、ユーイング肉腫と診断した(図2)。

術後経過：術後徐々に上下の椎体にも骨硬化像を認め、呼吸麻痺をきたしたため人工呼吸器による呼吸管理、さらにLinacによる放射線療法(4000rad)も施行したが術後1年7カ月目に頭蓋骨転移を認め、肺転移による呼吸障害のために死亡した(図3)。化学療法の併用も考慮したが、全身状態が悪く使用を断念した。

図2 症例1
椎体摘出標本(HE染色)
骨梁間にび慢性に小類円形腫瘍細胞の増殖を認めた。

図3 症例1
術後X線経過
徐々にC₅椎体の上下の椎体にも骨硬化像の進行を認めた。

症例2：19歳，女性。

主 訴：左上肢の知覚障害。

現病歴：1984年11月，交通事故後より左上肢の知覚障害が出現し近医にてリハビリを行い症状一時軽快したが，受傷後2カ月目より左上肢の疼痛，知覚障害増強し，またX線像にてC6椎体破壊も認められるようになったため，受傷後5カ月で当科入院となる。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

入院時所見：左頸部にび慢性の腫脹を認め，両手指に知覚鈍麻があり，深部反射ではbiceps, PTRの亢

進を認めたが，病的反射はなく，歩行および筋力ともに正常であった。

X線，CT所見：頸椎側面X線では，C6椎体に骨透亮像，破壊像を認め，CTではC6椎体の左側が完全に破壊されていた（図4）。

Open biopsy：HE染色にて，未分化，多角形の異型細胞が一定の配列なく増殖しているのを認め，印環細胞様またはphysaliferous cell様細胞と思われる細胞も認められた。さらに，PAS染色陽性でジアスターゼ試験にて消化されたこと，臨床的に他臓器に原発巣がなく，年齢的に癌が考えにくいことより，脊索腫を疑った（図5）。

臨床経過：術前放射線照射（ ^{60}Co .6000rad）を行ったのち，Luque rectangleを用い後方除圧固定術施行。さらに1カ月後前方からの腫瘍摘出，固定術を行った。術後経過も一時良好であったが，入院7カ月後，両肺野に転移し，化学療法（ビンクリスチン，アクチノマイシンD，シクロホスファミド）と再度放射線療法行っても頸椎の骨破壊が進行し，四肢麻痺の状態となり，術後1年2カ月で死亡した（図6）。

剖検時病理組織：甲状腺に頸椎生検時と同様の腫瘍細胞を認め，また他の転移巣でも同様の所見を認めた。これらの腫瘍細胞の一部には，サイログロブリン陽性細胞を認めることより，甲状腺原発の未分化癌と診断した。

剖検にてはじめて転移性癌と診断できた症例であった。

症例3：25歳，男性。

図4 症例2
単純X線およびCT像
C₆椎体に骨透亮像，破壊像を認め，CTではC₆椎体の左側が完全に破壊されているのを認めた。

図5 症例2
生検病理組織像（HE染色）
未分化・多角形の異型細胞が一定の配列なく増殖し，印環細胞またはphysaliferous cell用細胞も認められた。

図6 症例2
術後X線経過
骨破壊の進行を認めた。

図7 症例3

単純X線, MRI, CT像

C₃椎体の高度な破壊およびMRIにて、前方からの脊髄の圧迫を認め、CTではC₃椎体から左椎弓にかけ、骨破壊像を認めた。

主 訴：項部痛。

現病歴：1990年4月頃より誘因なく項部痛出現。近医受診するも異常なしと言われ鎮痛剤投与を受けた。同年9月3日項部痛増悪。第3頸椎の異常陰影を指摘され近医入院。徐々に両手シビレ感および歩行障害を認めたため9月25日当科紹介入院となる。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

入院時所見：歩行は不能で、握力も右12kg、左15kgと低下し、深部反射は両上下肢とも亢進、病的反射も両側陽性、知覚は温存されていた。MMTは上下肢すべて4、膀胱直腸障害はなかった。

頸椎X線、MRI、CT所見：頸椎X線側面像ではC₃椎体の高度な破壊を認め、MRIではC₃椎体は消失し椎間板のみが残存、前方から脊髄は圧迫されていた。CTではC₃椎体から左椎弓にかけて、腫瘍による骨破壊像を認めた(図7)。

入院当日直ちに後方および前方からの腫瘍摘出、固定術を行った。

病理所見：類円形のやや多角性を示す腫瘍細胞が、一定の配列をとらず密に増殖しており、核の大小不同を認めるも、明らかな異型性は認められないことから

図8 症例3

初回および3回目手術時病理組織像(HE染色)悪性度の進んだ組織像を認めた。

図9 症例3

術後X線経過
骨破壊の進行を認めた。

髄膜腫と診断した(図8)。

臨床経過：初回手術後も再発を繰り返すため、その後さらに2回にわたり前方および後方からの腫瘍摘出固定術を行い、その間、放射線療法(^{60}Co 4000rad)、ビンクリスチン、アドリマイシン、シクロホスファミドを中心とした化学療法も行ったが、ともに治療効果なく術後1年2カ月で多発転移をきたし死亡した(図9)。

各手術時病理所見：2回目手術時の摘出標本までは初回とさほど変化なく悪性所見に乏しかったが、3回目の摘出組織では、異型性を伴う腫瘍細胞が認められ、細胞形態も多角性を示し、核分裂像も多く認められることより、悪性度の進んだ組織像と考え悪性髄膜腫と診断した(図8)。

良性から悪性へと組織像が変化した髄膜腫であり、初回手術時、肉眼的に硬膜は正常と思われたが、可能ながざり硬膜も含めて切除を行い、切除断端の十分な病理学的検査を行うべきであったと反省させられた症例である。

考 察

それぞれの悪性腫瘍の頸椎発生頻度は国立癌センターの報告⁴⁾によれば、ユーイング肉腫3/431例(0.7%)、転移性甲状腺癌20/281例(7%)で、また、脳腫瘍全国集計報告⁵⁾によると髄膜腫で悪性の占める割合は272/4925例(5.5%)であり、脳脊髄比は4:1、またLevyら³⁾は、脊髄原発の髄膜腫のうち頸髄レベルでの発生は17%であったと報告しており、いずれもまれな疾患¹⁾²⁾⁶⁾といえる。

3症例の予後に関しては、発症から手術までの期間は3カ月から8カ月、手術から死亡までの期間は1年2カ月から1年7カ月であり、治療による延命効果も得にくく、予後も悪かった。しかし、これら悪性腫瘍3例のうち、前方固定のみを行った症例1では寛解時

間を得ることはできなかったが、前方および後方固定を行った他の2症例では、3カ月から4カ月の寛解期間を得ることができた。頸椎の悪性腫瘍では、内固定を行う場合、前後からの強固な内固定を行うことにより、短期間ではあるが患者のQOLを向上しうえるものと思われた。

ま と め

①極めてまれな若年発生頸椎悪性腫瘍の3例を報告した。

②若年者ゆえに進行も早く、診断、治療も困難で、予後も悪かった。

③強固な内固定を行うことで、短期間ではあるが、寛解期間を得ることができた。

参 考 文 献

- 1) 金 敬夫：特異な経過をとった頸椎ユーイング肉腫の一例，整形外科と災害外科，33：188-191，1984.
- 2) 小山素麿：Meningioma. 脊椎脊髄，4：205-212，1991.
- 3) Levy, W.J., Bay, J. and Dohn, D.: Spinal cord meningioma. J Neurosurg, 57：804-812，1982.
- 4) 日本整形外科学会骨腫瘍委員会：全国骨腫瘍患者登録一覧表，国立癌センター，1990.
- 5) 脳腫瘍全国統計委員会：脳腫瘍全国集計調査報告，6，1987.
- 6) 山本三郎：剖検にてはじめて転移性癌と診断できた第6頸椎腫瘍の1例．整形外科，41：737-741，1990.