高年齢で発症した腰髄部奇形腫の1例

中山 賢司・宮坂 佳男・松森 邦昭・別府 俊男・浅尾 武士*

Spinal Teratoma

Report of an Elderly Case

Kenji NAKAYAMA, Yoshio MIYASAKA, Kuniaki MATSUMORI, Toshio BEPPU
and Takeshi ASAO*

Departments of Neurosurgery and *Pathology, Sagamihara National Hospital, Sagamihara

Abstract

An older case of spinal teratoma was reported. The patient, a 51-year-old female, was referred because of gait disturbance. Neurological examination revealed a slight motor weakness (L4-S3), sensory disturbance (L5-S1) in the right lower leg and right positive Babinski's sign. Plain X-ray film of the spine showed flattening of the pedicles (Th12-L2) and scalloping of the vertebral bodies (Th11-L4). A metrizamide myelogram demonstrated a complete block at the Th12 vertebral level. Spinal computed tomography revealed high density and low density areas and calcification. Th11 through L3 laminectomy was performed and a solid white tumor with a cyst was subtotally removed. The postoperative course was uneventful. A histopathological examination of the tumor showed it to be a teratoma.

Among the 68 previously reported cases of the spinal teratoma, ten were elderly or above 40 years of age. In the elderly cases, the tumor locations were mostly limited to the lumbosacral region. In this case, spinal computed tomography was very useful in making the preoperative diagnosis.

Key words: spinal cord tumor, teratoma, adult, lumbar region, computed tomography

I はじめに

中枢神経系に発生する奇形腫のうち、頭蓋内に発生するものは比較的多く経験されている。これに対し脊髄に発生する奇形腫の報告は少なく、また報告された症例の多くは若年発症したものである。今回我々は、きわめてまれな高年齢発症脊髄奇形腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

II 症 例

<患者> 51才、女性

主訴：歩行障害

家族歴・既往歴：特記すべきことなし

現病歴：1977年7月頃より歩行障害が出現したが、以後

症状に大きな進行はなく日常生活に支障はなかった。1980年8月に転倒しその後右下肢の脱力が著明となり、しだいに歩行障害が進行したため、1981年7月に精査の目的で当科入院となった。経過中、下肢の知覚異常や排尿排便障害は認めなかった。

入院時所見：全身所見に異常はなく、身体的な合併奇形も認めなかった。神経学的所見としては、右下肢L₄~S₃領域の中等度筋力低下が存在したが下肢腱反射の亢進はなく、右Babinski signは陽性であり、右下肢L₅~S₁領域の軽度知覚鈍麻を認めた。

脊椎単純X線撮影所見：前後像ではTh₁₂~L₂にかけて関節突起の菲薄化を認め、また側面像ではTh₁₁~L₄にかけて椎体後面のscallopingを認めた(Fig. 1)。頸椎・胸椎に異常所見はなかった。

国立相模原病院脳神経外科 *同病理

Address reprint requests to: K. Nakayama, M. D., Department of Neurosurgery, Sagamihara National Hospital, 18-1 Sakuradai, Sagamihara, Kanagawa 228.

受稿 1983年4月8日 受理 1983年10月11日

Fig. 1

Fig. 2

Fig. 1 Plain X-rays of the spine showing flattening of the pedicles (Th12-L2) in the anterior view and scalloping of vertebral bodies (Th11-L4) in the lateral view.

Fig. 2 Metrizamide myelograms demonstrating a complete block at the Th12 vertebral level.

脊髓造影所見：後頭下穿刺により施行した metrizamide myelography では Th₁₂ 椎体レベルで造影剤の充盈欠損像を認め、これは拡大した脊椎管全体を占拠する硬膜内腫瘍の像を呈していた (Fig. 2)。

CT 所見：General Electric 社製 CT scanner にて得られた Th₁₂ レベルの CT 像 (Fig. 3A) では、脊椎管内に吸収係数 -106 の低吸収域を示す脂肪組織と考えられる腫瘍が存在し、一部に石灰化も認められた。また L₁ レベルの CT 像 (Fig. 3B) では逆に吸収係数 72 の高吸収域を示す腫瘍組織が認められ、多様性の組織を持つ腫瘍であることが

判明した。

以上の検査結果より脊髓硬膜内に発生した良性腫瘍が疑われ、特に CT 所見から奇形腫の可能性が考えられた。

手術所見：1981年8月29日、腹臥位にて Th₁₁~L₃ の laminectomy を施行した。硬膜を開放すると、Th₁₂~L₃ にかけて白濁したクモ膜に被われた腫瘍を認めた (Fig. 4)。腫瘍は黄白色の液体を含む cyst の部分と脂肪組織および白色の実質性部分より成り立っており、脊髓実質内に浸潤し脊髓との境界が不鮮明で剝離困難であったため、亜全摘とした。

組織学的所見：摘出標本の組織像では、豊富な膠原線維組織のなかに移行上皮や導管様円柱上皮で被われた大小の嚢胞がみられ、その付近には粘液腺房様組織も認められた (Fig. 5A)。また他部位には豊富な脂肪組織がみられ、これに接しあるいは混在した状態で非常に不規則な神経線維束様組織が認められた (Fig. 5B)。

III 考 察

脊髓に発生する奇形腫はまれであり、Austin²⁾ は脊髓腫瘍 314 例中 1 例、約 0.3%、また Sloof ら¹⁶⁾ は 1,322 例中 2 例、約 0.1% であったとしている。しかし小児における発生頻度はやや高く、Guidetti ら⁸⁾ は小児脊髓腫瘍 509 例中 14 例、約 2.75% であったと報告している。我々が渉猟しえた脊髓奇形腫は 68 例で生下時から 67 才までに広く分布して

Fig. 3 Spinal computed tomographs. A: At the Th12 level a low density area (attenuation coefficient of -106 H.U.; white frame) and calcification are seen. B: At the L1 level a high density area (attenuation coefficient of 72 H.U.; black frame) is seen.

Fig. 4 Operative photograph (left) and illustration (right) show a white solid tumor with a cyst, containing yellow fluid, at the conus medullaris. The tumor invaded the spinal cord and nerve roots.

いたが、20才以上の成人例は27例であり、うち40才以上の高年齢症例は10例と少ない^{1,3,6,7,9,12-14,16,18}。さらにこの10例中我々の症例と同様に40才以降に初発症状を呈したものは6例であり、きわめてまれなものであった(Table 1)。

脊髄奇形腫は3対2で男性に多く発生し、性差に関しては頭蓋内に発生する奇形腫と違いはなかった。これを性別が判明した23例の成人例に限ってみても、男性16例、女性7例と同様の傾向が窺える。

脊髄奇形腫の発生母体としては、以下の3つの可能性が考えられている。すなわち、① Bucy and Haymond⁵⁾ の不完全に成熟した双胎説、② Kubie and Fulton¹¹⁾ の脊髄奇形腫に多くの cyst が存在することに基づいた脊髄中心管の diverticulum からの発生説、③ Bucy ら⁴⁾、Sachus ら¹⁵⁾ の卵細胞または多分化能を持った胚細胞が胎生早期に神経管内に迷入し脊髄の成長に伴って発育するという迷入説であり、現在のところ3番目の迷入説がもっとも支持されている。

病理組織学的には、奇形腫は皮膚・神経組織などの外胚葉性組織、結合組織や骨・筋肉などの中胚葉性組織、および呼吸器や腸管組織の内胚葉性組織の3胚葉成分を持つものと定義されており、単に表皮や皮膚付属器から成るものは dermoid あるいは epidermoid、肺や消化管の組織に似た epithelium lining を持つものは enterogenous cyst として区別されている。しかしここで問題となるのは、2胚葉成分しか認められない場合である。これについて Hosoi¹⁰⁾、Willis¹⁹⁾ らは、胎生早期に迷入した胚細胞の分裂発育は外胚葉・中胚葉性組織と比較して内胚葉性組織では弱く、腫瘍実質のごく一部にしか認められなかったり消失している可能性もあり、内胚葉成分が認められないということは奇形腫を否定する根拠にはなりえないと述べている。我々が渉猟しえた症例で記載のはっきりしているもののなかにも2胚葉性奇形腫が17例含まれているが、このうち内胚葉性組織を持つものは3例にすぎず、内胚葉性組織が発育しにくいという Hosoi らの説を支持するものと言える。なお本症例においては、移行上皮成分を内胚葉性とするか中胚葉性とするか、また粘液腺房を外胚葉性とするか内胚葉性とするかなどの問題があり、さらには神経線維束様組織が腫瘍成分であるのか既存の脊髄神経成分が腫瘍の中に取り込まれただけのものなのかという問題も存在し、断定することは困難であるが、3胚葉性成分から成る奇形腫と考えている。

脊髄奇形腫は頸髄部から仙尾部までの全域に認められるが、脊髄の単一髄節に局限することはまれで大部分が数髄節に及んでいる。好発部位は頸髄部と腰仙髄部であり、こ

Table 1 Elderly cases of spinal teratoma

Author	Age (yrs)	Sex	Location	Onset age (yrs)
Frick (1911) ⁶⁾	41	F	L2 -L5	34
Naffziger <i>et al.</i> (1935) ¹²⁾	45	M	L1 -S	29
Adams <i>et al.</i> (1947) ¹¹⁾	41	M	Th10-L4	28
Furtado <i>et al.</i> (1951) ⁷⁾	42	F	Th4 -Th7	21
Bakay (1956) ³⁾	65	F	L1 -L2	65
Teng <i>et al.</i> (1958) ¹⁸⁾	44	F	Th12-L1	41
Rewcastle <i>et al.</i> (1964) ¹³⁾	49	M	L1 -L4	48
Sloof <i>et al.</i> (1964) ¹⁰⁾	67	M	S	67
Hansebout <i>et al.</i> (1965) ⁹⁾	47	M	L2	45
Rosenbaum <i>et al.</i> (1978) ¹⁴⁾	49	M	Th8 -Th10	45
Present case	51	F	Th12-L3	47

L indicates lumbar; Th, thoracic.

Fig. 5 Microscopic view of the tumor showing multiple cysts or clefts lined by transitional epithelial tissue and columnar epithelial tissue of the ductal type in the collagenous fibrous area (A), and irregular nerve bundle like tissue and abundant adipose tissue in another area (B). HE stain, $\times 100$.

の部位は胎生期の脊髄形成においてもっとも遅い時期に形成されるため種々の奇形が出現しやすく、同様に胚細胞の迷入も起こりやすいことに起因しているものと考えられ

Fig. 6 Location of the spinal teratoma in adult cases. The abscissa shows the number of tumors found at each spinal cord segment. Th indicates thoracic.

る。成人例における局在は Fig. 6 に示すごとく、上部腰髄に多発し頸髄部がこれに続いている。しかし40才以上の高年齢発症例においては頸髄部での発生がないという特徴が認められ、これは成人のなかでもさらに高年齢発症と関係があるように思われる。すなわち、ゆっくりと発育する奇形腫が腰仙髄部に発生した場合、比較的広い脊椎管と神経根だけの存在という解剖学的な条件が腫瘍の圧迫により出現する神経症状の発現時期を遅らせ、高年齢発症になりやすいものと推定できる。

脊髄奇形腫の神経症状は、Takeuchi¹⁷⁾によると運動障害62%、神経根痛54%、知覚障害32%、排尿排便障害35%であり、他の良性脊髄腫瘍(dermoid, epidermoid, lipoma など)と大差はない。一方X線学的には interpedicle widening や椎体後縁の scalloping, 特に小児例では spina bifida や脊椎の変形などの合併所見がみられ、また石灰化像が存在する場合もあるが、いずれも脊髄奇形腫に特徴的なものではない。したがって、神経症状や脊椎単純X線撮影では奇形腫と他の良性腫瘍との鑑別は不可能である。ところで、本症例の術前診断にもっとも有効であったのは CT 検査である。奇形腫は種々の組織から成るため CT 上では多様性の density 像を呈し、また cyst 像が認められることな

どから、CT 所見により他の良性腫瘍との鑑別がある程度可能である。ゆえに脊髄腫瘍においても、頭蓋内腫瘍と同様 CT 検査を積極的に行うべきである。

脊髄奇形腫の治療としては、良性腫瘍であることから当然全摘出を行うべきである。しかしながら、奇形腫は長期にわたって徐々に発育する腫瘍であるため脊髄実質や神経根と高度に癒着し、神経機能を悪化させずに全摘出することは困難な場合が多い。このような場合には、奇形腫の発育が緩徐であることに鑑み、亜全摘出で脊髄実質や神経根を温存することに努め、術前にみられた神経症状の改善を計ることが望ましいと思われる。

IV 結 語

40才以上の高年齢で発症した腰髄部を占拠する脊髄奇形腫の1症例を報告し、併せて文献の考察を加えた。

本論文の要旨は、第4回日本脳神経外科学会関東地方会(1981年12月、東京)において発表した。

文 献

- 1) Adams RD, Wegener W: Congenital cyst of the spinal meninges as cause of intermittent compression of the spinal cord. *Arch Neurol Psychiat* 58: 57-69, 1947
- 2) Austin G: *The Spinal Cord. Basic Aspects and Surgical Considerations*. Springfield, CC Thomas, 1972, pp 335-346
- 3) Bakay L: Case records of the massachusetts general hospital Case 42502. *New Eng J Med* 266: 1153-1157, 1956
- 4) Bucy PC, Buchanan DN: Teratoma of the spinal cord. *Surg Gynec Obstet* 60: 1137-1144, 1935
- 5) Bucy PC, Haymond HE: Lumbosacral teratoma associated with spina bifida. Report of a case with review of the literatures. *Amer J Path* 8: 339-346, 1932
- 6) Frick K: Über ein Teratoma des Rückenmarks. *Frankfurt Z Path* 7: 127-134, 1911
- 7) Furtado D, Marques V: Spinal teratoma. *J Neuropath Exp Neurol* 10: 384-393, 1951
- 8) Guidetti B, Fortuna A: Differential diagnosis of intra-

medullary and extramedullary tumours. *Handbook of Clinical Neurology* 19: 51-75, 1975

- 9) Hansebout RR, Bertrand G: Intraspinal teratoma simulating protruded intervertebral disc. *J Neurosurg* 22: 374-379, 1965
- 10) Hosoi K: Intradural teratoid tumors of the spinal cord. Report of a case. *Arch Path* 11: 875-883, 1931
- 11) Kubie LS, Fulton JF: A clinical and pathological study of two teratomatous cysts of the spinal cord, containing mucous and ciliated cell. *Surg Gynec Obstet* 47: 297-311, 1928
- 12) Naffziger HG, Jones OW: Dermoid tumors of the spinal cord. Report of four cases with observations on a clinical test for the differentiation of the source of radicular pains. *Arch Neurol Psychiat* 33: 941-958, 1935
- 13) Rewcastle NB, Francoeur J: Teratomatous cysts of the spinal canal with "sex chromatin" studies. *Arch Neurol (Chicago)* 11: 91-99, 1964
- 14) Rosenbaum TJ, Soule EH, Onofrio BM: Teratomatous cyst of the spinal canal. Case report. *J Neurosurg* 49: 292-297, 1978
- 15) Sachus E, Horrax G: A Cervical and lumbar pilonidal sinus communicating with intraspinal dermoids. Report of 2 cases and review of the literature. *J Neurosurg* 6: 97-112, 1949
- 16) Sloof JL, Kernohan JW, MacCarty CS: *Primary Intramedullary Tumors of the Spinal Cord and Film Terminale*. Philadelphia, WB Saunders, 1964, 180 pp, pp 190-237
- 17) Takeuchi J: Congenital tumors of the spinal cord. *Handbook of Clinical Neurology* 32: 355-392, 1978
- 18) Teng P, Gordon J: Teratoma of the conus medullaris. Report of a case. *J Neurosurg* 15: 569-571, 1958
- 19) Willis RA: *Teratoma. Atlas of Tumor Pathology; Section 3, Part 9*. Washington, DC., Armed Forces Institute of Pathology, 1951, pp 3-58

〔別刷請求先：〒228 神奈川県相模原市桜台18-1、国立相模原病院脳神経外科、中山賢司〕