嚢胞の縮小を呈した頭蓋咽頭腫の1例

常盤 嘉一・中山 賢司・宮坂 佳男・松森 邦昭・別府 俊男・浅尾 武士*

Cystic Craniopharyngioma with Spontaneous Shrinkage of the Cyst

Case Report

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

*Departments of Neurosurgery and *Pathology, Sagami National Hospital, Sagami, Kanagawa*

Abstract

A rare case of cystic craniopharyngioma with spontaneous shrinkage of the cyst is reported. The patient, a 43-year-old male was referred because of visual field defect, transient disturbed consciousness and abnormal computerized tomography (CT) findings. Contrast enhanced CT scans showed a suprasellar cystic lesion with a high density nodule. Repeated CT scans revealed spontaneous shrinkage of the cystic lesion. The decrease in size of the cyst correlated well with the improvement of disturbed consciousness. An operation was performed, and the histopathological diagnosis was craniopharyngioma. It is believed that the shrinkage of the cyst seen in the present case was caused by spontaneous rupture of the cyst wall.

Spontaneous rupture of the cyst wall in cases of craniopharyngioma is extremely rare. Only 6 cases have been reported including 2 in which shrinkage of the cystic craniopharyngioma was confirmed.

Key words: craniopharyngioma, meningitis, computerized tomography

I はじめに

頭蓋咽頭腫の嚢胞が誘因なく破裂することはきわめてまれとされている^{3,6-10)}。しかも、破裂によって嚢胞の縮小を実際に確認しえた報告は採しえた文献上2例にすぎない^{3,10)}。今回我々は、CTスキャン上嚢胞の縮小を認め、その原因は嚢胞の自然破裂に由来する可能性が強い1症例を経験したので報告する。

II 症 例

<患者> 43才, 男性

主訴: 視野障害, 片麻痺

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 1982年5月4日, 突発する右片麻痺が出現し, 某医にて脳硬塞と診断された。

現病歴: 1983年2月頃より右側視野障害が出現し, 同年7月28日には意識が清明でないことを知人に発見された。8月8日某医に入院し, 8月10日に施行された脳波検査で4~5 Hzの θ 波が中心領および頭頂部にみられ, 軽度の意識障害の存在が示唆された。8月12日までの約2週間, 見当識障害, 作話, 尿失禁が持続し, 8月13日当科入院となった。経過中, 発熱, 頭痛, 嘔吐など髄膜炎の所見はなく, 脳硬塞発作再発の兆候もなかった。

入院時一般所見: 身長160 cm, 体重51 kg, 血圧130/92 mmHgであり, その他理学的異常所見を認めなかった。

神経学的所見: 意識は清明で, 瞳孔, 対光反射および眼

国立相模原病院脳神経外科 *同病理

Address reprint requests to: K. Tokiwa, M.D., Department of Neurosurgery, Kitasato University, 1-15-1 Kitasato, Sagami, Kanagawa 228.

受稿 1984年2月8日 受理 1984年4月26日

球運動に異常なく、視力は右1.2、左1.2と正常であった。精密視野検査では右側同名性半盲が認められた。その他の脳神経に異常所見はみられなかった。運動系および感覚系では脳硬塞による右側痙攣性片麻痺と右下肢の知覚鈍麻が認められた。

入院時検査所見：血液・生化学・尿検査で異常所見なく、血沈は1時間値20 mm、2時間値54 mm、血液像で炎症所見なく、肝機能も正常であった。血清電解質はNa 144 mEq/l、K 3.4 mEq/l、Cl 100 mEq/l、尿電解質はNa 4.9 mEq/l、K 10.7 mEq/l、Cl 38 mEq/lを示した。尿量は1,200 ml/day、尿比重は1.030であった。血清浸透圧は277 mOsm/l、尿浸透圧は750 mOsm/l、このときの血漿抗利尿ホルモンは4.5 pg/mlであり、尿崩症を示す所見はなかった。

内分泌学的検査：LH-RH 負荷試験、TRH 負荷試験、メトピロン試験では正常反応を示した。インスリン負荷試験ではGHが前値1.2 ng/ml、30分値0.7 ng/ml、60分値3.4 ng/ml、120分値1.4 ng/mlと低反応を示した。

髄液検査：初圧110 mmH₂O、細胞数2/3(リンパ球)、蛋白141 mg/dl、糖69 mg/dlであった。

頭蓋単純線撮影：トルコ鞍近傍に石灰化はみられず、またトルコ鞍の変形はなかった。

脳血管撮影：頸動脈造影では前大脳動脈A₁部の挙上、前脈絡叢動脈の外側偏位など、トルコ鞍部の占拠性病変を疑わせる所見はなかった。椎骨動脈造影でも異常はなかった。

CT スキャン：1982年5月4日、片麻痺発作時のCTでは左内包後脚部に小さな脳硬塞像がみられた。Retrospectiveにみると、トルコ鞍上部に小さなlow density areaが認められた(Fig. 1)。1983年8月8日、意識障害出現時の

CTではトルコ鞍部のcystic lesionが著明に増大し、両側側頭葉および中脳大脳脚が圧迫されていた。しかし水頭症の所見はなかった(Fig. 2)。1983年8月15日当科入院時、すでに意識障害が改善されたときのCTではcystic lesionがやや縮小しており、enhanced CTでは嚢胞壁とその一部が結節状に増強された(Fig. 3)。さらに1ヵ月後、9月22日のCTではcystic lesionは著明に縮小した(Fig. 4)。なお、嚢胞内部の吸収係数は8月15日が23で9月22日が25であった。

頭蓋咽頭腫の術前診断のもと、9月29日に開頭術を施行した。

手術所見：腫瘍は視交叉部後方に位置し、特に左の視神経を下方より上方へ圧排し、同部を著明に菲薄化していた。右同名性半盲はこの所見によって説明可能であった。大部分がキサントクロミーの内容液を有する嚢胞であり、一部充実性の部分が存在した。嚢胞内容液の蛋白量は

Fig. 2 Plain CT scan in August, 1983 demonstrating a large suprasellar cystic lesion (arrow). Bilateral temporal lobes and the midbrain are compressed and deformed by the cyst. No ventricular enlargement is noted.

Fig. 1 Computerized tomography (CT) scan taken in May, 1982 showing a small cystic lesion in the region of the suprasellar area (arrow). A small infarction (arrowhead) in the region of the left internal capsule is also shown.

Fig. 3 Contrast enhanced CT scan in August, 1983 showing a high density nodule and a capsule of the cyst. Decrease in size of the cyst in comparison with prior CT scans is seen.

Fig. 4 CT scan in September, 1983 revealing extreme decrease in size of the cyst. The compression to the surrounding structures by the cyst is relieved.

2,480 mg/dl で Froin 陽性であった。

術後、右同名性半盲は完全に改善した。なお、術前・術後を通じて髄膜炎は認められなかった。

病理組織学的所見：嚢胞壁より採取された組織片の内面は非角化型の重層扁平上皮で被われており、その外側には線維性結合組織より成る被膜がみられた。腫瘍実質部より採取された組織片には重層扁平上皮の性格を有する上皮組織が不規則な索状あるいは層状に増殖しており、その間にはしばしば浮腫性変化の目立つ線維性結合組織性間質がみられた。いわゆる adamantinomatous pattern はみあたらず、ほとんど重層扁平上皮型の頭蓋咽頭腫であった。上皮基底層の細胞は重層扁平上皮組織のそれに一致し、上皮索中心部には時に変性によると思われる不規則な小嚢胞の形成がみられた。しかし角化傾向は弱く、まれに単一細胞性の不

全角化細胞が散見される程度であった (Fig. 5)。

III 考 察

我々が今回報告した頭蓋咽頭腫の特徴は、経過中に CT スキャンによって明らかに嚢胞の縮小が確認されたことであり、さらに嚢胞の増大時に出現した意識障害が嚢胞の縮小とともに改善した点である。嚢胞の増大に関しては、発症からの時間的経過より判断して頭蓋咽頭腫の自然経過とみなしてよいと考える。しかも、嚢胞の増大時に両側側頭葉、中脳大脳脚が圧迫され見当識障害、作話、尿失禁の症状が出現したことは多くの adult type の頭蓋咽頭腫における伸展方向および神経症状^{1,9)}と良く一致しており、比較的典型的な臨床経過をとったものと考ええる。一方嚢胞縮小の機序としては、外傷もなく腰椎穿刺による人為的誘因もないことから嚢胞壁の自然破裂がもっとも考えやすい。その他、腫瘍内出血により増大した嚢胞の内容液が吸収されて縮小に至った可能性は、CT スキャンおよび組織学的所見から判断して否定的である。また、嚢胞内容液と周囲のクモ膜下腔に存在する髄液との膠質浸透圧差は、嚢胞の増大に関与する可能性はあっても嚢胞の縮小を説明する条件にはなりがたい。

我々が探した文献上、頭蓋咽頭腫が自然破裂をきたした報告は Table 1 に示す 6 例にすぎない。なお詳細は不明であるが、これら 6 例のほかに Russell ら⁹⁾は外傷を契機として嚢胞壁の破裂を認めた 3 例を報告している。これらの報告例のなかで実際に嚢胞の縮小が確認された症例は、Kaemmerer (脳血管写)³⁾および Scully ら (CT スキャン)¹⁰⁾の 2 例にすぎない。しかし CT スキャンの普及に伴い嚢胞

Fig. 5 Photomicrographs demonstrating craniopharyngioma of squamous cell type. HE stain, $\times 50$ (left), $\times 25$ (right).

Table 1 Reported cases of spontaneous rupture of craniopharyngioma cyst

Case No.	Author	Age, Sex	Confirmation of rupture	Confirmation of decrease in size of cyst
1	Russell <i>et al.</i> (1961) ⁹⁾	67, F	CSF (meningitis)	—
2	Kaemmerer (1964) ³⁾	46, M	CSF (meningitis)	CAG
3	Patrick <i>et al.</i> (1974) ²⁾	21, M	CSF (meningitis)	—
4	Lloyd <i>et al.</i> (1977) ⁶⁾	29, F	CSF (meningitis)	—
5	Scully <i>et al.</i> (1980) ¹⁰⁾	60, M	CSF (meningitis)	CT scan
6	Ravindran <i>et al.</i> (1980) ⁸⁾	12, M	ventriculography autopsy (meningitis)	—

CSF indicates cerebrospinal fluid; CAG, carotid angiography.

縮小の確認が容易となるため、このような症例は今後増えるものと思われる。

従来、頭蓋咽頭腫の嚢胞内容がクモ膜下腔に散布されるとコレステリン結晶による chemical meningitis をきたすことが知られている⁴⁾。Table 1 に示す自然破裂の 6 例^{3,6-10)}でも髄液所見や剖検により髄膜炎の存在が確認されている。一方我々の症例では、髄液検査および臨床経過から髄膜炎を起こした可能性は否定的である。しかし、髄膜炎をきたしていないことは嚢胞の自然破裂を否定する根拠とはならない。すなわち、Liszcza ら⁵⁾は頭蓋咽頭腫の組織培養の際、腫瘍から産生されるコレステロール量は症例によってかなり差があると述べ、Banna²⁾も同様にコレステロール含有量が低値を示した頭蓋咽頭腫を報告している。したがって、コレステロール含有量の少ない頭蓋咽頭腫は自然破裂をきたしても chemical meningitis を惹起する可能性は少ない。Chemical meningitis を示さなかった我々の症例も、おそらくコレステロール含有量が少なかったものと思われる。一方 Klerk ら⁴⁾は、組織学的所見は異なるが類似した内容液を有する epidermoid が術後に chemical meningitis をきたす頻度は 1.6% にすぎないと述べており、これらの腫瘍内容液がクモ膜下腔に散布されても実際に髄膜炎を起こす可能性は予想されるより少ないのではなからうか。CT スキャン出現以前には chemical meningitis をきたさなければ自然破裂の診断および嚢胞縮小の確認がきわめて困難であった事実は、逆に我々の症例のごとく髄膜炎を伴わないで嚢胞縮小の経過をとった頭蓋咽頭腫の報告例が少なかった理由の一つと考えられた。

IV 結 語

経過中に CT スキャンにて嚢胞の縮小を確認しえた頭蓋咽頭腫の 1 症例を報告した。嚢胞の縮小が確認された症例は文献上きわめて少なく、また本例では嚢胞の増大と縮小が意識障害の出現あるいは改善と密接に関連していた。嚢

胞縮小の原因として、嚢胞の自然破裂の可能性が高いことを論説した。

本論文の要旨は、第 12 回日本脳神経外科学会関東地方会 (1983 年 12 月、東京) において発表した。

文 献

- 1) Banna M: Craniopharyngioma in adults. *Surg Neurol* 1: 202-204, 1973
- 2) Banna M: Craniopharyngioma, based on 160 cases. *Br J Radiol* 49: 206-223, 1976
- 3) Kaemmerer E: Ein Fall von Spontanheilung eines Craniopharyngeoms. *Nervenarzt* 35: 42-44, 1964
- 4) Klerk DJJD, Spence J: Chemical meningitis with intracranial tumors. *S Afr Med J* 48: 131-135, 1974
- 5) Liszcza T, Richardson EP, Phillips JP, Jacobson S, Kornblith PL: Morphological, biochemical, ultrastructural, tissue culture and clinical observations of typical and aggressive craniopharyngiomas. *Acta Neuropathol (Berl)* 43: 191-203, 1978
- 6) Lloyd MH, Belchetz PE: The clinical features and management of pituitary apoplexy. *Postgrad Med J* 53: 82-85, 1977
- 7) Patrick BS, Smith RR, Bailey TO: Aseptic meningitis due to spontaneous rupture of craniopharyngioma cyst. *J Neurosurg* 41: 387-390, 1974
- 8) Ravindran M, Radhakrishnan VV, Rao VRK: Communicating cystic craniopharyngioma. *Surg Neurol* 14: 230-232, 1980
- 9) Russell RWR, Pennybacker JB: Craniopharyngioma in the elderly. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 24: 1-13, 1961
- 10) Scully RE, Galdabini JJ, Hcneely BU: Case records of the Massachusetts General Hospital. *N Engl J Med* 302: 1015-1023, 1980

[別刷請求先: 〒228 神奈川県相模原市北里1-15-1, 北里大学脳神経外科, 常盤嘉一]