高齢男子に発症した Anterior Sacral Meningocele の 1 例

佐藤 一史・林 實・河野 寛一・久保田紀彦・野手 雅幸*・藤田 秀春*
中川原儀三*

Anterior Sacral Meningocele

Case Report

Kazufumi SATO, Minoru HAYASHI, Hirokazu KAWANO, Toshihiko KUBOTA, Masayuki NODE*, Hideharu FUJITA* and Gizou NAKAGAWARA*

*Department of Neurosurgery and *First Department of Surgery, Fukui Medical School, Fukui*

Abstract

A 53-year-old male presented with an abdominal mass and urinary disturbance. Plain pelvic X-rays revealed a scimitar deformity of the sacrum. Computed tomography (CT) of the abdomen and lumbosacral spine showed a $13 \times 17 \times 17$ cm, hypodense, cystic mass. Metrizamide myelography disclosed a bony defect at the S2 level through which contrast material entered the pelvic cyst, confirming the diagnosis of anterior sacral meningocele. Magnetic resonance imaging demonstrated the extent of the abdominal mass and its communication with the thecal sac through the anterior sacral defect. The patient underwent surgery *via* the transabdominal approach. The mass was extremely adherent to the intestine and it was difficult to reach the stalk of the sac. The wall of the meningocele was resected to the extent possible, and was tightly sutured following a meningocele-peritoneal shunting procedure. Postoperatively, the patient was neurologically normal, but 4 months later he was readmitted because of headaches and clouding of consciousness. CT showed bilateral chronic subdural hematomas. Following their evacuation, the patient recovered uneventfully. The clinical and neuroradiological features and the surgical approaches to anterior sacral meningoceles are discussed.

Key words: anterior sacral meningocele, myelography, computed tomography, magnetic resonance imaging

I はじめに

anterior sacral meningocele (以下 ASM)は脊椎破裂の特殊型であり、仙骨前面の骨欠損部より髄膜組織が脱出して骨盤内に髄膜瘤を形成する先天性疾患である。本疾患は、1837年 Bryant⁸⁾により初めて記載された比較的古い疾患であり、本邦での報告はきわめて少ない^{16,31)}。腹部症状を主訴として若い成人女性に好発するとされ、男性例はまれ

であり、とりわけ50才以上の高齢男性例は Thomford ら²⁷⁾の報告のみである。ASMの確定診断は主にミエログラフィーによってなされてきたが、CT導入以後その質的診断が飛躍的に向上し^{5,17,18,22,28,30,31)}、さらに最近ではMRIの有用性も報告されている¹⁷⁾。

今回我々は、腹部腫瘍および排尿障害にて発症した高齢男子ASMの1例を経験したので、その臨床所見、MRIを含めた放射線学的所見、治療に関して文献的考察を加え

福井医科大学脳神経外科 *同第一外科

Address reprint requests to: K. Sato, M.D., Department of Neurosurgery, Fukui Medical School, 23 Shimoaizuki, Matsuoka-cho, Yoshida-gun, Fukui 910-11.

受稿 1988年7月11日 受理 1988年11月4日

Fig. 1 Pelvic X-ray showing the defect in the sacrum (arrowheads).

Fig. 2 Plain computed tomography (CT) scan of the abdomen and pelvis, demonstrating a huge, cystic mass herniating through the anterior sacral defect.

報告する。

Ⅱ 症 例

＜患者＞ 53才，男性

主訴：腹部腫瘤，排尿障害

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：46才時，大動脈弁閉鎖不全症のため弁置換術を受けた。以後，血栓予防のためワーファリンを1日3mg服用していた。

現病歴：1984年5月頃より腹部膨満感，血尿を認め，近医で腹部腫瘍の診断を受けたが放置していた。1985年9月頃より頻尿および尿失禁が出現した。1987年3月18日，当

院第一外科に入院した。

入院時所見：腹部は膨隆し，下腹部正中に約15×20 cmの弾性軟の腫瘤を触知した。頻尿および尿失禁以外に，神経学的異常は認められなかった。

放射線学的検査所見：腹部単純撮影では，第2仙骨椎体左側に半月刀状の形成不全を認めた(Fig. 1)。腹部CTでは第2仙骨椎体の形成不全，および腹腔内に13×17×17 cmの巨大な腫瘤を認め，腫瘤は一様な低吸収域を示した(Fig. 2)。MRI (SE 1500/70 msec)では，腹腔内腫瘤は均一な高信号を示し，仙骨の欠損部を通して脊髄腔に連続している所見を示していた(Fig. 3)。腰椎穿刺によるミエログ

Fig. 3 Magnetic resonance images (spin echo 1500/70 msec) of the abdomen and lumbosacral spine, demonstrating the pelvic mass and its communication with the thecal sac through the anterior sacral defect.

ラフィーでは、第2仙骨椎体の欠損部位から腹腔内への造影剤の流入を認めた(Fig. 4)。なお、頭部単純撮影、頭部CTでは異常を認めなかった。

手術所見：1987年4月21日、ASMの診断にて開腹術を施行した。下腹部中央に軟らかい腫瘤を認め、その壁を切開すると水様透明の脳脊髄液が流出した。髄膜瘤の基部は径約3 cmで仙骨前面の欠損部に一致していたが、その周囲には明らかな神経組織は認められなかった。髄膜瘤の外側壁背側部は腸管と強く癒着しており、腫瘤外側壁の基部までの剥離は腸管損傷の危険が高く困難であった。髄膜瘤を可及的に縫縮し、腫瘤と腹腔間にPudenzの腹腔端シャントチューブ2本を設置して閉腹した。

病理組織学的所見：髄膜瘤壁は厚さ約1 mmで内外二葉の膜により形成されていた。外側膜は膠原線維より成る硬膜組織であり、内側膜は髄膜細胞と神経膠細胞の混在した組織であった。

術後経過：手術直後より腹部膨隆は消失した。4月24日の腹部CTでは、髄膜瘤の著明な縮小を認めた(Fig. 5)。術後、一過性のイレウスとなったが軽快し、頻尿、尿失禁も軽減した。患者は、神経脱落症状を残さず、6月3日退院した。

同年8月24日頃より頭痛および意識障害が徐々に進行し、CTにて両側の慢性硬膜下血腫を認め、8月31日当科

Fig. 4 Metrizamide myelogram, showing the communication between the thecal sac and the anterior spinal mass.

Fig. 5 Postoperative CT scan of the abdomen and pelvis, disclosing a significant decrease in the size of the mass.

入院となった。入院時トロンボテストは40%であった。血腫吸引除去術を施行し、症状は軽快、退院した。第2回目退院1年後の現在、平常の生活を営んでいる。

III 考 察

ASMは脊椎破裂のまれな1型で、仙骨部の髄膜組織が仙骨前面の骨欠損部より骨盤内に脱出した先天性疾患である。1837年Bryant⁸⁾が分娩後に死亡した1例を記載して以来、1983年までに148例が報告されている²⁸⁾が、本邦での報告はきわめて少ない^{16,31)}。家族例の報告^{9,14,17)}もあるが、一般には非遺伝性疾患と考えられている。Villarejoら²⁸⁾によれば、性差は約4:1の割合で女性に多い。女性例においては約60%が20~30代で発症し、10才以下での発症は約20%であり、本症は若い成人女性に好発すると言える。一方男性例は、Villarejoら²⁸⁾が渉猟した31例、およびHolnessら¹²⁾、Leeら¹⁷⁾の例に今回の症例を加え、計34例である。男性例の特徴の一つに幼少時の発症が比較的多いことが挙げられ、10才以下が15例と約半数を占めている。50才以上の高齢発症に限ると、55才の女性例²⁴⁾を最高年として以下54才²⁰⁾、50才³⁾の女性例があるが、男性例ではThomfordら²⁷⁾が54才の症例を報告しているのみである。本例は53才の男性例であり、きわめてまれな症例と考えられる。

症状は腹部臓器の圧迫症状が主であり、女性の場合は便秘や腹痛が圧倒的に多く、腹部腫瘤、排尿障害、腰痛、月経困難症などがこれに次いでいる²⁸⁾。男性の場合は便秘、腹部腫瘤、排尿障害、便失禁などを訴えるものが多いが、我々の症例では便秘は認めず、腫瘤の尿路系への圧迫症状が主であった。小児例においても症状は成人のそれと同様であることが多いが、鎖肛^{13,28)}や肛門狭窄^{4,9,13)}などの奇形を伴うこともしばしばある。50才以上の高齢者において

は、2例^{3,24)}で腰痛、排尿障害、便秘を主訴としており、Meigs²⁰⁾の女性例およびThomfordら²⁷⁾の男性例では無症状であった。

ASMにはしばしば腫瘍の合併が報告されている。仙骨部の奇形腫^{10,15,17,21)}、類皮腫^{7,22,25,28)}、過誤腫¹⁸⁾、頭蓋内のteratocarcinoma¹²⁾などが主たるもので、その合併率は約10%である²⁸⁾。また、Marfan症候群に合併した症例^{19,26)}も報告されている。本症候群には高頻度に大動脈弁閉鎖不全症を合併するとされるが、本例においてMarfan症候群を示唆する身体所見は認められず、大動脈弁閉鎖不全症は偶然の合併と考えられた。

放射線学的には、ASMはほとんどの場合ミエログラフイーによって確定診断が得られるが、その茎部が細い場合には腫瘍内への造影剤の流入が悪いために腫瘍の形や大きさを必ずしも正確に把握できるとは限らず、時に正常像を示すこともあるとされている²⁾。しかし、CT導入後はその大きさや周囲臓器との関係などを正確に知ることが可能となった^{5,17,18,22,28,30,31)}。本例においては、さらにMRIによる画像診断の機会を得、MRIでは腫瘍は脊髓腔と同等かつ一様な信号強度を示しており、内容が髄液であることが示唆された。矢状断像では仙骨の欠損部を通して脊髓腔と髄膜瘤が交通する所見を呈した。また、前述のごとくASMには腫瘍がしばしば合併するとされ、MRIはその診断にもきわめて有用である¹⁷⁾と考えられる。

治療に関して、Amacherら³⁾は、保存的治療では妊娠・出産時の合併症や直腸内に自然穿破することにより髄膜炎を起こし、30%が死亡したと報告した。また、腫瘍容積を減少させるため経直腸的あるいは経陰的にこれを穿刺することは髄膜炎併発の危険性が高く、禁忌とされている。手術療法には経腸骨的方法と経腹的方法とがある。前者は1938年にAdson¹⁾により導入されたもので、仙骨の椎弓切除を行い、茎部を結紮したのちに腫瘍を穿刺して退縮させる手法である。この方法はBarlowら⁶⁾やHenleyら¹¹⁾によって追試され、現在もっともしばしば行われている。しかし、腫瘍の茎が大きく茎部の閉鎖が不可能である場合には経腹的な手術を追加する必要があるとされる^{25,28)}。一方経腹的な手術法は、1918年にRoux²³⁾により初めて成功例が記載されて以来、約30例の報告がなされている。Amacherら³⁾は、経腹的な手術死亡率は27%であり、これは経腸骨的な手術死亡率の9.5%に比してきわめて高いことを指摘している。しかし、死因のほとんどは髄膜炎合併によるものであり、強力な抗生物質が出現した現在では経腹的な手術で好成績をあげている^{2,4,15-18,21,29)}。さらにLeibowitzら¹⁸⁾は、経腸骨的手術法では腫瘍を合併している場合にその確認や摘出は困難であるとしており、外科医と脳外科医によ

る経腹的な手術を推奨している。本例においても腹部外科医との共同で経腹的な手術を施行し、良好な結果を得た。術後合併症として水頭症の報告²¹⁾があること、また髄液圧による縫合不全を防止するためにも、本例では腫瘍と腹腔間にシャントチューブを併設した。なお、開腹術後約4ヵ月で慢性硬膜下血腫を生じたが、これはワーファリン内服のための出血傾向によるものと思われた。

IV 結 語

高齢男子に発生したanterior sacral meningoceleの1例を報告した。経腹的な手術により髄膜瘤を縫縮し、良好な結果を得た。

本論文の要旨は、第22回日本脳神経外科学会中部地方会(1987年11月、名古屋)において発表した。

文 献

- 1) Adson AW: Spina bifida cystica of the pelvis: Diagnosis and surgical treatment. *Minn Med* 21: 468-475, 1938
- 2) Altebarmakian VK, Putnum TC, Rabinowitz R: Anterior sacral meningocele presenting as abdominal mass. *Urology* 17: 592-595, 1981
- 3) Amacher AL, Drake CG, McLachlin AD: Anterior sacral meningocele. *Surg Gynecol Obstet* 126: 986-994, 1968
- 4) Anderson FM, Burke BL: Anterior sacral meningocele: A presentation of three cases. *JAMA* 237: 39-42, 1977
- 5) Balériaux-Waha D, Osteaux M, Terwinghe G, Meeus A, Jeanmart L: The management of anterior sacral meningocele with computed tomography. *Neuroradiology* 14: 45-46, 1977
- 6) Barlow D, Gracey L: Anterior sacral meningocele causing urinary retention. *Brit J Surg* 50: 732-734, 1963
- 7) Brown MH, Powell LD: Anterior sacral meningocele. *J Neurosurg* 2: 535-538, 1945
- 8) Bryant T: Case of deficiency of the anterior part of the sacrum, with a thecal sac in the pelvis, similar to the tumor of spina bifida. *Lancet* 1: 358-360, 1837
- 9) Cohn J, Bay-Nielsen E: Hereditary defect of the sacrum and coccyx with anterior sacral meningocele. *Acta Paediat Scand* 58: 268-274, 1969
- 10) Haddad FS: Anterior sacral meningocele: Report of two cases and review of the literature. *Canad J Surg* 1: 230-242, 1958
- 11) Henley RB, Lawrence LB: Pelvic meningocele: A case report. *J Neurosurg* 23: 206-207, 1965
- 12) Holness RO, Hoffman HJ, Mancor K, Armstrong D: Intracranial teratocarcinoma in a child with anterior sacral and intrasacral meningocele. *Neurosurgery* 2: 143-147, 1978
- 13) Kaufmann HJ: Anterior sacral meningocele. *Ann Radiol (Paris)* 10: 121-128, 1967
- 14) Klenerman L, Merrick MV: Anterior sacral meningocele occur-

- ring in a family. *J Bone Joint Surg [Br]* 55: 331-334, 1973
- 15) Klerk DJJ, McCusker I, Loubster JS: Anterior sacral meningoceles. *S Afr Med J* 54: 361-365, 1978
 - 16) 小山素麿, 岩城和男, 花北順哉, 石川純一郎, 近藤明恵: Anterior sacral meningocele の 1 例と文献的考察. *小児の脳神* 2: 221-226, 1977
 - 17) Lee KS, Gower DJ, McWhorter JM, Albertson DA: The role of MR imaging in the diagnosis and treatment of anterior sacral meningocele. Report of two cases. *J Neurosurg* 69: 628-631, 1988
 - 18) Leibowitz E, Barton W, Sadighi P, Ross JS: Anterior sacral meningocele contiguous with a pelvic hamartoma. *J Neurosurg* 61: 188-190, 1984
 - 19) Le Mercier Y, Decazes JM, Mechali D, Redondo A, Aboulker J, Coulaud JP: Méningite purulente par inoculation chirurgicale d'une méningocèle sacrée antérieure: Une complication rare de la maladie de Marfan. *Ann Med Interne (Paris)* 131: 289-290, 1980
 - 20) Meigs JV: Anterior meningocele as a gynecologic problem. *Prog Gynecol* 4: 365-392, 1963
 - 21) Oren M, Lorber B, Lee SH, Truex RC, Gennaro AR: Anterior sacral meningocele: Report of five cases and review of the literature. *Dis Colon Rectum* 20: 492-505, 1977
 - 22) Quigley MR, Schinco F, Brown JT: Anterior sacral meningocele with an unusual presentation: Case report. *J Neurosurg* 61: 790-792, 1984
 - 23) Roux S: Contribution à l'étude de la méningocèle sacrée antérieure. *Rev Med Suisse Rom* 38: 47-71, 1918
 - 24) Sherman RM, Caylor HD, Long L: Anterior sacral meningocele. *Amer J Surg* 79: 743-747, 1950
 - 25) Smith HP, Davis GH: Anterior sacral meningocele: Two case reports and discussion of surgical approach. *Neurosurgery* 7: 61-67, 1980
 - 26) Strand RD, Eisenberg HM: Anterior sacral meningocele in association with Marfan's syndrome. *Radiology* 99: 653-654, 1971
 - 27) Thomford NR, Miller CA, Sherman NJ: Presacral meningocele: Case report with discussion. *Ohio State Med J* 66: 55-59, 1970
 - 28) Villarejo F, Scavone C, Blazquez MG, Castroviejo IP, Higuera AP, Sanchez AF, Bertrand CG: Anterior sacral meningocele: Review of the literature. *Surg Neurol* 19: 57-71, 1983
 - 29) Wilkins RH, Odom GL: Anterior and lateral spinal meningocele, in Vinken PJ, Bruyn GW (eds): *Handbook of Clinical Neurology*. New York, Elsevier, 1978, pp 193-230
 - 30) Wolpert SM, Scott RM, Carter BL: Computed tomography in spinal dysraphism. *Surg Neurol* 8: 199-206, 1977
 - 31) 横田俊平, 牧 隆敏, 深沢啓治, 金谷淳子, 山岸俊彦: 化膿性髄膜炎発症によって発見された anterior sacral meningocele の 1 例. *小児臨* 38: 317-322, 1985
- 〔別刷請求先: 〒910-11 福井県吉田郡松岡町下合月23, 福井医科大学脳神経外科, 佐藤一史〕