症 例 報 告

軸椎齒突起後方腫瘤性病変により頸部脊髄症を来した1例

中村 文明, 諸岡 芳人, 畑崎 聖二, 石垣 共基, 山本 章貴

A Case of Cervical Myelopathy associated with Pseudotumor of the Retro-Odontoid Space

by

Fumiaki Nakamura, Yoshito Morooka, Seiji Hatazaki, Tomoki Ishigaki, Akitaka Yamamoto

from

Department of Neurosurgery, Saiseikai Matsusaka General Hospital

Tumors at the craniovertebral junction are uncommon and difficult to diagnose clinically. We report on the case of a 79-year-old woman who presented with a history of progressive cervical myelopathy. Neuroimaging studies demonstrated a tumor behind the odontoid vertebra and ventral compression of the rostral spinal cord by this retro-odontoid mass. Histopathologically, the surgical specimen was a non-neoplastic fibrocartilaginous mass. Since the tumor was not neoplastic and amenable to surgical excision, differential diagnosis of this "pseudotumor", a new pathological entity recently described by Sze and Crockard, is important.

Key word: pseudotumor, retroodontoid, myelopathy

Spinal Surgery 16 (2) : 161~166, 2002

はじめに

頭蓋頸椎移行部の腫瘤性病変は比較的まれとされ、臨床的に診断するのは困難なこともあるが、MRIが導入されて以来、この部の病変の診断は比較的容易となってきた。頭蓋頸椎移行部腫瘤には、髄膜腫、神経線維腫、脊索腫、転移性腫瘍などの腫瘍性病変のほかに非腫瘍性病変があげられる。最近、軸椎齒突起後方に形成された非腫瘍性腫瘤についての報告が散見されるようになってきた[1-6]。こうした腫瘤をpseudotumorと呼称し、新たな病態と報告している。原因としては、亜脱臼[2]、変性変化[1]、偽関節[3]などがあげられているが、我々も環軸関節不安定性を伴わず、変性が原因と考えられる軸椎齒突起後方の腫瘤性病変により頸部脊髄症を来した1例を経験したので報告する。

症 例

症例：79歳、女性

主訴：両手のしびれ、巧緻運動障害、歩行障害

既往歴、家族歴：慢性関節リウマチ、頭頸部に関する外傷の経歴なし

現病歴：約1年前から両手のしびれを自覚するようになり、近医で加療されていたが症状は改善せず、経過観察されていた。しびれはその後も徐々に増悪傾向を示し、半年前から箸が持ちにくくなった。2ヶ月前から歩行障害が出現し、歩行不能となったため平成13年6月15日に当院神経内科に入院した。MRIで軸椎齒突起後方に腫瘤性病変が認められ、加療目的のため、同年7月10日脳神経外科に転科入院となった。

入院時神経学的所見：両上肢知覚障害、巧緻運動障害、四肢不全麻痺、膀胱直腸障害、四肢深部腱反射亢進を認めた。

(Received : February 22, 2002, Accepted : May 10, 2002)

済生会松阪総合病院 脳神経外科 (連絡先：中村文明, 〒515-8557 三重県松阪市朝日町1区15-6 済生会松阪総合病院脳神経外科)
Address reprint request to: Fumiaki Nakamura, M.D., Department of Neurosurgery, Saiseikai Matsusaka General Hospital, 1-15-6, Asahimachi, Matsusaka, Mie, 515-8557, Japan

Fig.1. Magnetic resonance (MR) images obtained at T2-weighted image (left) show an epidural mass of low signal intensity behind the odontoid. The mass is shown to consist of materials of different high signal at T2-weighted image and low signal at T1-weighted image (right) which presumably presenting the cystic area and compressing the spinal cord.

神経放射線学的所見：頸椎単純X線検査では、環軸椎に不安定性または骨破壊所見は認められず、中～下位頸椎に軽度の変形性変化を認めるのみであった。頸椎MRIにおいて、軸椎歯突起後方にT1強調像で等から低信号、T2強調像で低信号を呈する硬膜外と思われる腫瘍性病変を認め、さらに一部でT1強調像で低信号、T2強調像で高信号をしめす嚢胞性成分が後方へ突出しており、同高位レベルで脊髄は著明に圧迫されていた (Fig.1)。造影T1強調像では、嚢胞性成分およびそれに連続する腫瘍周囲の一部が増強効果を受けたが、硬膜外腫瘍の大部分は増強効果を受けなかった (Fig.2)。CTミエログラフィーでは、歯突起後方に腫瘍を認め、脊髄は前方より著明に圧迫され変形している所見を認めた (Fig.3)。以上の所見から、軸椎歯突起後方の腫瘍性病変による頸部脊髄症と診断し腫瘍摘出術を行った。

手術所見：患者を腹臥位とし環椎後弓と軸椎椎弓の左側部分椎弓切除を施行し、左後外側からアプローチした。硬膜嚢は緊張しており、経硬膜的に腫瘍摘出のため、まず左背外側で硬膜およびくも膜を切開し、歯状靱帯、第

Fig.2. Sagittal (left) and axial (right) contrast-enhanced T1-weighted images demonstrate a marginal enhancement around the retro-odontoid mass and the cystic area.

Fig.3. CT myelography confirms the presence of the retro-odontoid mass creating significant compression of the spinal cord.

2頸神経の一部を切開し、脊髄を軽度、右に回旋させると歯状靱帯前方の脊髄腹側に腫瘍を認めた。腫瘍表面は腹側のくも膜で覆われ腹側から後方へ突出していたが脊髄との癒着は認められなかった。くも膜を剥離すると黄色の表面を呈する嚢胞状の腫瘍が硬膜を破り硬膜内に突出している様に見えた (Fig.4)。この腫瘍を切開するとゼリー状の内容物が流失してきた。この嚢胞性腫瘍は硬膜外の実質性の黄色から灰色の粗造な線維性組織と連続しており可及的に摘出し脊髄への圧迫を解除した。腹側

Fig.4. Intraoperative photograph after a left C1-2 partial hemilaminectomy, oriented with the left side cephalad, showing a yellowish amorphous mass (large arrow) extruded from the ventral dural tear. Also small arrow indicated left C2 rootlets.

Fig.5. Histological appearance of the surgical specimen of the excised mass, showing fibrocartilage and degenerate ligament.

Fig.6. Ventral compression of the spinal cord by retro-odontoid mass was improved after surgery in postoperative MRI.

の硬膜外腫瘍摘出腔および硬膜欠損部には、フィブリン糊を充填し整復した。摘出標本の病理学的検査所見では、線維性組織と軟骨性組織の混在している所見を認めたが、腫瘍性組織は認めなかった (Fig.5)。

術後経過：術後経過は良好で、MRIでは脊髄の圧迫は改善を認めた。(Fig.6) 頸部脊髄症による歩行障害、両手の巧緻運動障害は改善し、独歩退院した。術後約7ヶ月経過した現在も再発は認められていない。

考 察

頭蓋頸椎移行部位での腫瘍は比較的まれで、診断に難渋することもあったが、近年、MRIの普及に伴い軸椎歯突起後方に生じた非腫瘍性腫瘍による頸部脊髄症の報告がなされるようになってきた。最近、Szeら〔2〕は環軸椎亜脱臼に伴った歯突起後方“pseudotumor”の症例を報告し、また、Crockardら〔1〕はpseudotumorである脊髄圧迫病変の原因が非腫瘍性であり、新たな病態としての認識の重要性を報告している。自験例も軸椎歯突起後方の“pseudotumor”による頸部脊髄症の一例であると考えられる。

われわれの症例に類似した症例は、最近軸椎歯突起後方の非腫瘍性腫瘍として報告されている〔1-6〕。これらのうちSzeら、吉田ら、茶谷らの症例では環軸椎不安定性に伴う軸椎後方のpseudotumorを報告しており、Crockardら、浮洲らの症例では明らかな環軸椎亜脱臼を伴わないpseudotumorの報告例である。腫瘍の組織学的検索では、Crockard〔1〕、吉田〔6〕、茶谷〔4〕らは線維軟骨組織および変性線維組織であり、Sze〔2〕らは線維性肉芽組織であったと報告している。自験例においては、明らかな環軸椎不安定性を伴っておらず、組織所見においても炎症所見も認められずSzeらの述べている環軸椎亜脱臼に伴う慢性的な機械的刺激により生じた炎症性線維性肉芽腫とは異なっているところである。一方、Crockardら〔1〕の報告例は、全例高齢であり、環軸椎不安定性を認めていない点、組織学的に炎症所見が認められず、線維軟骨組織からなる腫瘍である点において自験例とまったく同一の所見であった。彼らはこのpseudotumorの発生原因として、頸椎において変性を有する高齢者において後縦靱帯や、環椎横靱帯に亀裂が生じ、その後修復が行われ、それらが繰り返された結果、腫瘍が形成されると推測している。我々の症例においても発生原因として彼らの説と同様と思われる。

Pseudotumorの診断は、MRIが有用であることはいくまでもない。腫瘍は辺縁平滑、時として分葉状の形態を示すこともあり、増大すると脊髄を前方から圧迫する。T1強調画像では均一な低から等信号、T2強調画像では低信号を示し、増強効果はないか、あってもごくわずかとされている〔2〕。自験例でも歯突起後方腫瘍の硬膜外成分は増強効果を受けておらず、硬膜内に突出した腫瘍周囲のみが増強効果を受けていた。CT所見では、軸椎歯突起後方の軟部組織と等吸収値を示す腫瘍として認められ、石灰沈着を認められることもあるが骨破壊像や

骨侵食の所見は見られていない〔4〕。鑑別診断としてはこの部位に生じる腫瘍性および非腫瘍性の腫瘍があげられる。腫瘍の代表的なものとして髄膜腫、神経線維腫、脊索腫、転移性腫瘍などがあり、非腫瘍性の代表例としては、慢性関節リウマチに伴うパンスス、後縦靱帯骨化症、synovial cyst、外傷後の歯突起周囲の癒痕などが報告されている〔1〕。これら腫瘍とpseudotumorとは、MRIのT1およびT2強調画像での信号強度の違い、増強効果の有無、さらにCT所見での骨侵食、骨破壊像の有無などにより鑑別は比較的容易と思われる。

軸椎後方のpseudotumorに対する治療法については、これまでの報告を見ると、経口的進入法による腫瘍摘出が理想的と考えられこの術式を選択されていた報告もあるが〔1, 2〕、手技的に煩雑で、また術後の環軸椎不安定性が危惧され患者にとって侵襲的な方法と思われる。一方で、環軸椎不安定性を伴ったpseudotumorにおいて腫瘍摘出術は行わず、後頭骨頸椎後方固定のみで腫瘍の縮小が見られたとの報告例も散見される〔4-6〕。自験例においては、術前にpseudotumorと確定診断に至っていなかったこと環軸椎不安定性を伴っていなかったことおよび症状の進行が比較的急速で頸髄圧迫が著明であったことから後方経硬膜的到達法によるアプローチで腫瘍の摘出、脊髄の除圧を行い、後方固定は施行しなかった。術前から軸椎歯突起後方の腫瘍性病変の鑑別診断にpseudotumorを念頭においておけば、先にも述べたようにretro-odontoid pseudotumorの中には後方固定のみで腫瘍の縮小を認められる症例も報告されており、本例においても後方固定のみでも腫瘍の縮小が見られた可能性もある。従って、頭蓋頸椎移行部、特に歯突起後方の腫瘍性病変が認められた場合には、pseudotumorの存在を常に念頭に置く必要があると思われる。本例においては術後経過はまだ9ヶ月と短い現時点では環軸椎不安定性および腫瘍の再発は認めていない。今後も注意深く経過観察し、環軸椎不安定性を伴い腫瘍再増大による症状の悪化を認めれば、後方固定を追加することで病状の進行は予防できるものと考えている。

文 献

1. Crockard HA, Sett P, Geddes JF, Stevens JM, Kendall BE, Pringle JA: Damaged ligaments at the craniocervical junction presenting as an extradural tumor: a differential diagnosis in the elderly. J Neurol Neurosurg Psychiatry 54: 817-

中村ほか：軸椎齒突起後方腫瘤性病変により頸部脊髓症を来した1例

- 821, 1991
2. Sze G, Brant-Zawadzki MN, Wilson CB, Norman D, Newton TH: Pseudotumor of the craniovertebral junction associated with chronic subluxation: MR imaging studies. *Radiology* 161: 391-394, 1986
 3. Lansen TA, Kasoff SS, Tenner MS: Occipitocervical fusion for reduction of traumatic periodontoid hypertrophic cicatrix. *J Neurosurg* 73: 466-470, 1990
 4. 茶谷賢一, 中島慎一郎, 坂本厚人, 西岡真人, 高謙一郎：軸椎齒突起後方に生じた非腫瘍性腫瘤による頸部脊髓症の2例. 林浩一郎編, 別冊整形外科 29, 頸部脊髓症, 南江堂, 1996, 224-226
 5. 浮洲龍太郎, 櫛橋民生, 後閑武彦, 宗近宏次, 久保田 潤, 宮岡英世, 内田 均：軸椎齒突起後方の非腫瘍性腫瘤による頸部脊髓症の1例. *脊椎脊髓*13(9): 859-861, 2000
 6. 吉田宗人, 玉置哲也, 川上 守, 夏見和完, 南出晃人, 橋爪 洋：環軸関節不安定症に伴う齒突起後方腫瘤の病態と治療. *臨整外* 30(4): 395-402, 1995

Reviewer's comment : 井須 豊彦 (釧路労災病院 脳神経外科)

軸椎歯突起後方腫瘍性病変としては慢性関節リウマチが原因である環軸椎亜脱臼に伴うパンヌスが良く知られていますが、本報告例の様に他の疾患を合併せず脊椎不安定性が認められない報告は少なく非常に価値ある症例報告であります。脊椎不安定性が認められる場合には脊椎固定術のみにて腫瘍は消失すると言われております。脊椎不安定性が見られない場合には固定術のみで良いのか、本症例の様に腫瘍を摘出すべきか、後方除圧術のみで良いのか意見の分かれるところであり今後、検討を要します。

Reviewer's comment : 高橋 立夫 (国立名古屋病院 脳神経外科)

頭蓋頸椎移行部の稀な非腫瘍性病変による脊髄症の報告例である。

環軸関節の不安定性に伴って環椎横靱帯やその周囲が異常増殖し、その結果偽腫瘍化して脊髄を圧迫する症例は関節リウマチに伴った環軸椎脱臼に代表されるごとく、今までも数多く報告があった。この治療方法は不安定性をなくす為の後頭骨頸椎、あるいは環軸椎後方固定術でよいとされていた。本報告例は環軸関節に不安定性はなく、環椎前弓歯突起間距離も正常で、この部位には炎症性変化もないとのことである。この点でCrockard、浮州らの報告例と類似している。興味深いことに浮州らは頸髄腹側から圧迫している腫瘍には全く触れずに、環軸椎椎弓切除をおこない、更に後頭骨頸椎後方固定術を施行したら症状は改善したとしている。約3ヶ月後に撮影した頸椎MRI画像では、この腫瘍性病変は消失していた。この浮州らの報告は極めて貴重である。環軸椎のいわゆる不安定性はないのに、後頭骨頸椎後方固定術をしたことにより、腫瘍が消えている。環軸椎の回旋運動を制限することに意義があるのかと思われる。一方、環椎レベルで頸髄腹側からの圧迫病変を経硬膜的に（硬膜内へ入り）摘出するのは、軟らかいものなら安全に摘出できるが、硬いものは危険を伴うと思われる。本報告例の術後のMRI所見及び長期のフォローアップに興味のもたれる所である。