比較的急性の経過を呈した脊髄硬膜外血管脂肪腫の2例

Spinal Epidural Angiolipoma with Comparative Acute Progression—Report of 2 Cases—

荒井 篤 高石 吉 將 中村 直 人 岩橋 洋 文
岡田 真 幸 藤原 大 悟 鷗 山 淳 近 藤 威

Atsushi Arai, M.D., Yoshiyuki Takaishi, M.D., Ph. D., Naoto Nakamura, M.D., Hirofumi Iwahashi, M.D.,
Masayuki Okada, M.D., Daigo Fujiwara, M.D., Atsushi Uyama, M.D., Ph. D., Takeshi Kondoh, M.D., Ph. D.

Abstract

Spinal epidural angiolipomas are rare benign tumors that generally induce slow progressive cord compression and are commonly found in the thoracic region. Only about 170 cases have been reported. Here, we report two cases of spinal epidural angiolipomas.

Case 1 : A 54-year-old woman underwent total hysterectomy under general and epidural anesthesia in the gynecology department. She experienced weakness in both the lower limbs after the operation. Paralysis improved with medical treatment but numbness in the lower limbs remained. Magnetic resonance imaging (MRI) scan revealed an epidural tumor at the Th11–12 levels. Tumor resection was performed, and the pathological diagnosis was indicative of angiolipoma.

Case 2 : A 74-year-old woman initiated medical treatment with prednisolone for rheumatoid arthritis 4 months before admission to our hospital. She began to experience weakness of both the lower limbs, which gradually worsened. MRI scan revealed an epidural tumor at the Th3–5 levels. The patient underwent a laminectomy for gross total excision of the lesion. The tumor was pathologically diagnosed as an angiolipoma. After surgery, paraplegia gradually improved.

Spinal epidural angiolipomas are rare causes of myelopathy, but prompt surgical resection can result in favorable functional outcomes.

(Received : October 3, 2018 ; accepted : February 19, 2019)

Key words

spinal epidural tumor, angiolipoma, myelopathy, surgical resection

はじめに

脊髄血管脂肪腫はまれな良性腫瘍であり、これまで170例程度の報告に留まる。全脊髄腫瘍の0.14～1.2%で、脊髄硬膜外腫瘍の2～3%である。好発部位は胸椎が最多で、次に腰椎と頸椎が多い。これらの腫瘍は緩徐に増大して脊髄や神経根を圧迫するため、急性脊髄症はまれである。外科的手術が最善の治療であり、非浸潤性腫瘍であれば再発率は低い^{1,2,6,7)}。

今回われわれは、比較的高速な発症経過を辿ったまれな脊髄硬膜外血管脂肪腫を2例経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症例報告

症例1は、54歳女性。既往歴は、前年に乳腺腫瘍、脳梗塞あるも後遺症なし。

近医婦人科にて子宮筋腫に対して、全身麻酔および硬

慈恵会新須磨病院脳神経外科／Department of Neurosurgery, Shinsuma General Hospital

連絡先：〒650-0017 神戸市中央区楠町7-5-1 神戸大学大学院医学研究科脳神経外科分野 荒井 篤 [Address reprint requests to : Atsushi Arai, M.D., Department of Neurosurgery, Kobe University Graduate School of Medicine, 7-5-1 Kusunoki-cho, Chuo-ku, Kobe-shi, Hyogo 650-0017, Japan]

Fig. 1
Preoperative sagittal T1-(a), T2-weighted (b), sagittal and axial gadolinium-enhanced (c, d) magnetic resonance imaging demonstrating an epidural mass lesion at Th11 to Th12 level extending to the neural foramen at the right Th11/12 levels.

膜外麻酔下に子宮全摘出術を施行した。麻酔覚醒後に術前に認めなかった両下肢の脱力が出現し、経過観察中に脱力は改善したものの、両下肢のしびれが残存したため、当院紹介受診となった。診察時は明らかな麻痺はなく、両下肢深部腱反射亢進、両側バビンスキー反射陰性、両側 L4 以下に dysesthesia を認めた。Magnetic resonance imaging (MRI) にて Th11-12 レベルに T1 強調画像で等～やや高輝度、T2 強調画像で高輝度、ガドリニウムで均一に造影される硬膜外腫瘍を認め、右 Th11/12 椎間孔への進展を認めた (Fig. 1)。Th10-12 椎弓切除による腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は易出血性であり、硬膜背側の腫瘍を摘出し、側面～神経根に近い部分については可能な限り摘出し、一部残存させた。術中出血量は 200 ml であった。血管脂肪腫と病理診断された。術後下肢のしびれの改善を認め、経過良好で独歩退院となった。術後 2 年間、明らかな再発は認めていない。

症例 2 は、74 歳女性。既往歴は、15 年前にくも膜下出血、破裂前交通動脈瘤に対して開頭クリッピング術、水頭症に対して脳室腹腔シャント術を施行されているが、現在後遺症なし。ほか右乳がん術後、慢性 C 型肝炎治療後の状態である。

前医にて 4 カ月前から関節リウマチに対して、プレドニゾロン 13 mg (朝 10 mg, 眠前 3 mg)/日、メトトレキサート 8 mg/週を開始された。2 カ月前から両下肢の脱

力が出現し、徐々に増悪して歩行困難となったため、当院紹介となった。診察時は対麻痺(右下肢 manual muscle testing [MMT] 2, 左 MMT 3, 右バビンスキー反射陽性)、両下肢の深部覚低下、両下肢全体の dysesthesia, 排尿障害をきたしていた。MRI にて Th3-5 レベルに T1 強調画像で等輝度、T2 強調画像でやや高輝度、ガドリニウムではほぼ均一に造影される硬膜外腫瘍を認め (Fig. 2)、Th3-5 椎弓切除による腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は易出血性で、外側からの栄養血管処理に際して硬膜外静脈叢からの止血に難渋し、アピテン、サージセルにて止血を得たが、術中出血量 850 ml となり、輸血を行った。最終的に硬膜との癒着はなく、一塊にして摘出し得た (Fig. 3 a)。血管脂肪腫と病理診断された (Fig. 3 b)。術後、対麻痺、排尿障害は改善し、杖歩行でリハビリテーション病院へ転院し、術後半年以降は足裏のしびれはあるものの独歩可能となっている。術後約 1 年が経過するが、明らかな再発は認めていない。

考 察

脊髄血管脂肪腫はまれな腫瘍であり、1890 年に Berenbruck が報告したのが初めとされる^{1,2)}。やや女性に多いがほぼ性差はみられず、発症時平均年齢 42.9 歳 (10 日～85 歳) と 40～50 歳代に多くみられる。発生部位として

Fig. 2
Preoperative sagittal T1- (a), T2-weighted (b), sagittal and axial gadolinium-enhanced with fat suppression (c, d) magnetic resonance imaging demonstrating an epidural mass lesion at Th3 to Th5 level.

Fig. 3
Red-yellowish tumor resected in one block (a). Histopathological analysis of the resected tumors. The spinal angioliipoma consists of both mature fatty tissue and proliferating vascular elements (hematoxylin and eosin stained; magnification: ×40) (b).

は胸椎硬膜外背側が最多で、次に腰椎と頸椎が多く、上下への伸展は2～4椎体のことが多い。まれに *intramedullary* の報告もみられる。また、骨浸潤性を示す浸潤型血管脂肪腫と呼ばれるものは、脊髄硬膜外の腹側に発生することが多い³⁾。

MRI 画像所見は、脂肪成分は T1, T2 強調画像でともに高輝度を示し、血管成分は T1 強調画像で低輝度、T2 強調画像で高輝度を示す。T1 強調画像において、高信号の腫瘍内にみられる低輝度の点状陰影は、“hypointense

foci” と呼ばれ、脂肪組織内の血管像を反映し、血管脂肪腫に特徴的な所見とされている⁴⁾。本症例 2 では T1 強調画像で等輝度を示しており、脂肪成分より血管成分がやや多く含まれていた可能性がある。しかし、易出血性で輸血を要したが、術中所見では血腫や腫瘍内出血はなく、病理学的にも血管構造が顕著に目立つという結果はなかった。

脊髄血管脂肪腫の臨床所見については、40 歳代に背部痛やなんらかの下肢症状で発症することが多く、ほとん

どの症例では月単位で緩やかな進行を認める。しかしながら、急速に症状が悪化することもあり、sudden onsetのものは、腫瘍内出血や血栓を合併^{5,6)}、体重増加、妊娠によるホルモン変化⁷⁾での悪化が報告されている。

本症例1では、硬膜外麻酔後に対麻痺が出現し、脊髄硬膜外腫瘍が見つかったが、同様の報告では硬膜外麻酔後の対麻痺は、硬膜外血腫、椎間板ヘルニア、脊髄腫瘍などを鑑別する必要がある^{8,9)}。本症例1では硬膜外腫瘍の存在下に局所麻酔薬の注入が行われた結果、硬膜外腔圧が上昇し、脊髄症状が出現したと推測される。硬膜外腔に注入された薬剤は椎間孔から周囲の疎な組織に流出するため、保存的治療にて時間が経過するとともに薬液が硬膜外周囲に流出して、硬膜外腔圧が低下したことで脊髄症としての対麻痺の改善がみられたと考えられた。硬膜外腔に腫瘍が存在していると、神経症状が出現していなくても、硬膜外腔のコンプライアンスは限界まで低下しており、少量の薬液注入でも硬膜外腔の残留圧が高くなり、脊髄圧迫が生じると考えられる^{8,9)}。

妊娠によるホルモン変化や体重増加が発症の契機となった脊髄血管脂肪腫の報告もみられるが⁷⁾、本症例2では関節リウマチに対してステロイド治療が開始されて2カ月後より脊髄症状が出現している。ステロイド投与によって血管脂肪腫が増大することがあり、血管脂肪腫のアンドロゲン受容体との関連性が指摘されている。約3分の1の血管脂肪腫において、血管脂肪腫内の脂肪細胞や間質細胞にアンドロゲン受容体の発現が確認されている。さらに、アンドロゲン受容体はアンドロジェニック同化ステロイドに応答して、腫瘍の成長を調節する可能性があり、ステロイド剤による脂肪成分を含む腫瘍の急速な成長が起こり得ると報告している¹⁰⁾。本症例2でも、関節リウマチ治療としてのステロイド剤がアンドロゲン受容体に作用して腫瘍増大をきたした可能性が示唆される。

脊髄血管脂肪腫に対する治療では、外科的治療が第一選択となり、浸潤性の性質をもつ腫瘍を除いては、摘出術により良好な経過を辿る^{1,11)}。病理診断で悪性像をもつことはなく、再発の報告もまれである。手術に関しては、脊髄脂肪腫とは異なり、脊髄血管脂肪腫のほとんどの場合で硬膜との癒着はなく、全摘出が可能とされる。また、亜全摘に終わったとしても予後は良好であるため、神経機能障害のリスクを冒してまで全摘出にこだわる必要はない。後療法としての放射線治療は推奨されず、手術が亜全摘に終わった場合でも同様である¹⁾。

脊髄硬膜外血管脂肪腫は、良性の経過を辿ることが多い疾患である。本症例のように硬膜外麻酔薬注入による硬膜外腔の圧上昇による突発的な脊髄症や、ステロイド剤内服による腫瘍増大変化を契機とした脊髄症で発症することがあり、注意が必要であると考えられた。

結 語

比較的にまれな発症経過を辿った脊髄硬膜外血管脂肪腫の2例を報告した。術前診断にはMRIが有用であり、良好な経過を辿ることが多く、適切な診断と速やかな外科的治療が勧められる。脊髄硬膜外血管脂肪腫は、硬膜外麻酔やステロイド内服を契機に脊髄症による下肢症状を呈することがあり、鑑別疾患として留意すべきである。

利益相反開示

本論文に関して開示すべきCOIはない。

文 献

- 1) Samdani AF, Garonzik IM, Jallo G, et al : Spinal angioliipoma : case report and review of the literature. *Acta Neurochir (Wien)* **146** : 299-302, 2004
- 2) Rkhami M, Kedous MA, Achoura S, et al : Epidural angioliipoma : A rare cause of spinal cord compression. *Int J Surg Case Rep* **45** : 72-76, 2018
- 3) Leu NH, Chen CY, Shy CG, et al : MR imaging of an infiltrating spinal epidural angioliipoma. *AJNR Am J Neuroradiol* **24** : 1008-1011, 2003
- 4) Provenzale JM, McLendon RE : Spinal angioliipomas : MR features. *AJNR Am J Neuroradiol* **17** : 713-719, 1996
- 5) da Costa MD, Paz Dde A, Rodrigues TP, et al : Hemorrhagic onset of spinal angioliipoma. *J Neurosurg Spine* **21** : 913-915, 2014
- 6) Horiuchi K, Yamada T, Sakai K, et al : Hemorrhagic Sudden Onset of Spinal Epidural Angioliipoma. *Case Rep Orthop* **2018** : 5231931, 2018
- 7) Tsutsumi S, Nonaka Y, Abe Y, et al : Spinal angioliipoma in a pregnant woman presenting with acute epidural hemorrhage. *J Clin Neurosci* **18** : 849-851, 2011
- 8) 河野昌史, 安齋明雅, 北原雅樹, 他 : 術後の硬膜外鎮痛中に対麻痺が緩徐に発現した潜在性転移性硬膜外腫瘍の1症例. *日ペインクリニック会誌* **14** : 418-420, 2007
- 9) de Medicis É, de Leon-Casasola OA : Reversible paraplegia associated with lumbar epidural analgesia and thoracic vertebral metastasis. *Anesth Analg* **92** : 1316-1318, 2001
- 10) Syed SP, Brooks DG, Haupt HM, et al : Anabolic steroids causing growth of benign tumors : androgen receptor in angioliipomas. *J Am Acad Dermatol* **57** : 899-900, 2007
- 11) 川越秀一, 濱中秀昭, 黒木修司, 他 : 胸椎硬膜外に発生した血管脂肪腫の1例. *整形外科と災害外科* **66** : 761-763, 2017