

脊髄係留症候群と診断された高齢者の1例

森澤 洋介, 鳥本 一匡, 堀 俊太, 喜馬 啓介

篠原 雅岳, 平山 暁秀, 藤本 清秀

奈良県立医科大学泌尿器科学教室

A CASE OF TETHERED CORD SYNDROME IN AN ELDERLY MAN

Yosuke MORIZAWA, Kazumasa TORIMOTO, Shunta HORI, Keisuke KIBA,
Masatake SHINOHARA, Akihide HIRAYAMA and Kiyohide FUJIMOTO*The Department of Urology, Nara Medical University*

A 71-year-old man had been under treatment for nocturia with an anti-cholinergic agent at a urologic clinic for the last 2 years. Because the symptoms did not improve, he was referred to our hospital for treatment of urinary retention. Based on the findings of a neurological examination, we suspected the presence of a neurogenic bladder due to sacral lesions. Moreover, magnetic resonance imaging indicated tethered cord syndrome (TCS) due to spinal cord lipoma. He underwent surgical treatment for TCS, which improved storage function, but not voiding function. Generally speaking, we believe that early diagnosis of TCS facilitates early surgery that can prevent the development of neurogenic disorders. In the present case, if the neurological findings had been appropriately assessed and cystometry/urodynamic studies had been performed at an earlier stage, a prompt diagnosis could have been made and surgery could have been performed earlier as well. Although adult cases with TCS are rarely observed, TCS should be considered as one of the causes of intractable lower urinary tract symptoms.

(Hinyokika Kyo 60 : 189-193, 2014)

Key words : Neurogenic bladder, Tethered cord syndrome

緒 言

脊髄係留症候群は、脊髄終糸が何らかの原因によって仙骨尾側に固定係留され、脊髄が牽引されることで起こる神経障害の総称である¹⁾。通常、幼小児期に発見されることが多く、成人期の遅発例は比較的稀である²⁻⁴⁾。今回、71歳時に発症した1例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者 : 71歳, 男性

主 訴 : 尿閉

既往歴 : 特記すべき事項なし

家族歴 : 特記すべき事項なし

現病歴 : 2008年11月に夜間頻尿を主訴に近医診療所を受診した。尿意切迫感はなく、24時間尿量は約1,500 ml, 夜間多尿指数は約0.30であり、過活動膀胱、多尿、および、夜間多尿は除外された。また、1回排尿量は120~180 ml とやや少なく、最大尿流量7.1 ml/s と低下、残尿は約100 ml であった。血液検査でPSA 0.851 ng/ml, 経直腸の超音波検査で前立腺体積9.7 ml であり、前立腺癌および前立腺肥大症は否定的であった。蓄尿障害が疑われたため改善を期待してトルテロジン4 mg/日を約2年間投与されていたが、

症状に著明な変化はなかった。2011年2月より尿意切迫感が出現し、3月初旬より夜間に切迫性尿失禁が出現した。3月中旬に尿閉となり尿道カテーテルが留置され、精査・加療のため当科へ紹介された。

現 症 : 身長158 cm, 体重51 kg. 身体所見に特記すべき所見は認められなかった。

直腸診 : 前立腺はくるみ大で圧痛や硬結は認められなかった。

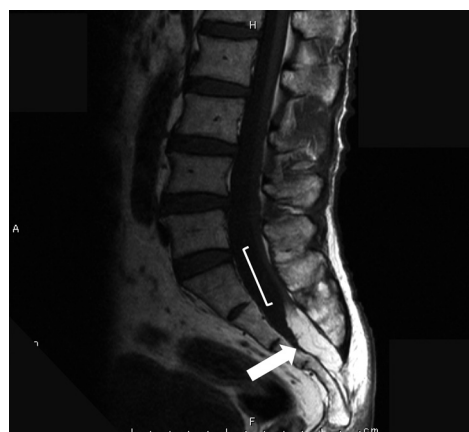


Fig. 1. T1-weighted sagittal magnetic resonance imaging of the lower spinal cord. The square bracket indicates the elongated spinal cord. The arrow indicates the lipoma.

神経学的所見：肛門トーン・肛門随意収縮・球海綿体反射は、いずれも減弱していたが、会陰部の知覚低下はなかった。その他の異常所見は認められなかった。

膀胱内圧測定（尿閉時、抗コリン薬中止後）：排尿筋過活動が認められ、膀胱コンプライアンスは 5 ml/cmH₂O と低下していた。

経過：仙髄疾患（S1-2 障害）による神経因性膀

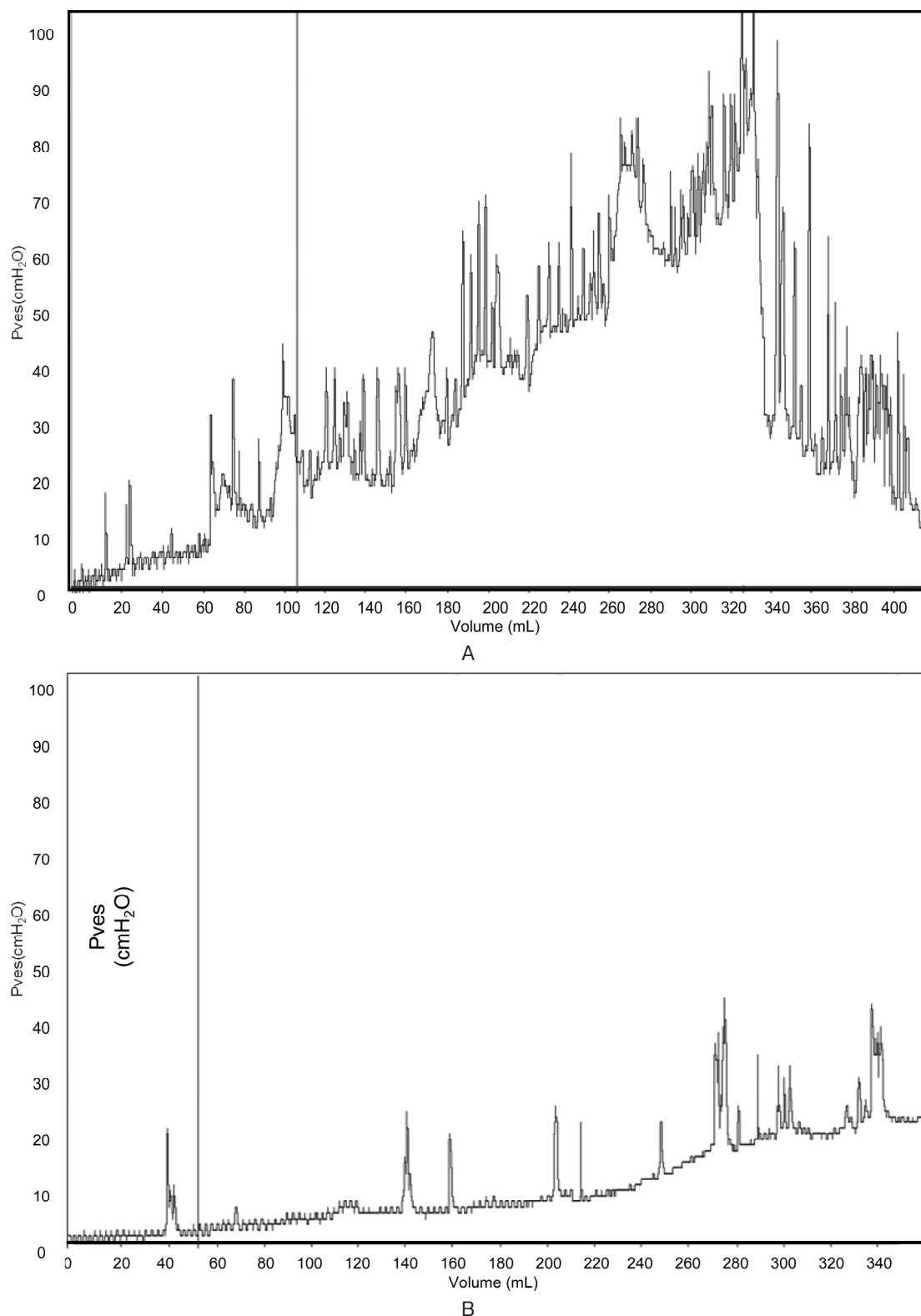


Fig. 2. Cystometry was performed with a single channel of intravesical pressure because the severe hemorrhoid did not permit measurement of the abdominal pressure through the anus. A: Preoperative cystometry showed detrusor overactivity and low bladder compliance. B: After the surgery detrusor overactivity disappeared and the bladder compliance improved partially.

膀胱が疑われ、神経内科へ紹介した。神経内科で脊髄MRIが施行され、脊髄脂肪腫とそれによる脊髄係留症候群と診断された (Fig. 1)。2011年4月に整形外科で係留解除術・脂肪腫摘出術が施行され、脂肪腫を全周性に剥離し係留されていた脊髄終糸が頭側へ移動することが確認された。術後2カ月後に施行した膀胱内圧測定で排尿筋過活動は消失し、膀胱コンプライアンスは改善した (Fig. 2)。しかし、排尿機能は回復せず、間欠自己導尿での排尿管理を継続している。

考 察

脊髄係留症候群の原因は脊髄脂肪腫、脊髄髄膜瘤、脊髄手術後、先天性皮膚洞など多彩である。成人発症の脊髄係留症候群は、小児期からの神経症状が成人期に悪化する場合と成人期に初めて発症する場合とがある^{2,5)}。成人期に初めて発症する例の中には、自験例のような高齢者も報告されている^{3,6-12)}。成人発症の脊髄係留症候群では背部痛や筋力低下などが初期症状となることが多いが^{1,9-12)}、膀胱直腸障害 (尿意切迫、尿失禁、便失禁など) が初期症状となることも多く¹³⁾、自験例のように夜間頻尿が初期症状となることもある⁴⁾。自験例では下肢痛や下肢の運動障害などの症状は認めなかった。また脊髄係留症候群の代表的な身体所見として仙骨部の皮膚異常 (皮膚洞、皮膚陥凹、色素沈着、異常な毛髪など) や下肢変形があるが、自験例と同様に成人期発症例ではそのような特徴的な身体所見を認めないことも多い^{2,5,10)}。

治療は手術による脊髄係留の解除が最優先されるが、症状が改善しないこともあり、特に膀胱機能障害の改善率は下肢痛などの疼痛症状と比較して劣るとされている^{9,10-12,14-16)}。Kondo らは症状が出現後3年以上経過している場合に手術による膀胱機能の回復は困難であると述べており¹⁵⁾、Huttmann らも初発症状から5年以上経過している症例では術後の改善率は6%のみであったと報告している¹¹⁾。しかし、早期に手術を施行すれば症状の回復や進行を防ぐことが可能とされているおり^{9-12,15-19)}、Filler らは膀胱機能障害を有する成人期発症の脊髄係留症候群患者に手術を施行し7例中5例 (57%)⁹⁾、Haro らは11例中7例 (64%)¹⁶⁾、Iskandar らは18例中11例 (61%)¹²⁾、Yamada らは48例中27例 (56%)⁵⁾ で症状が改善したと報告している。

自験例は手術が施行される約2年前に夜間頻尿を主訴に前医を受診しているが、以前から何らかの下部尿路症状を自覚していたにも関わらず年齢相応と自己判断し医療機関を受診していなかった可能性も十分にあり、症状の出現時期は不明である。高度の痔核は低活動膀胱による怒責排尿が長期間継続していた証拠であるのかもしれない。前医初診時の時点で発症後長期間

経過していた可能性も高く、整形外科医からは症状の改善が見込めない可能性があることを十分にインフォームドコンセントされた上で症状改善の唯一の選択肢である係留解除術が施行された。Filler らは手術にて脊髄係留が解除され、脊髄終糸が速やかに頭側に移動可能であった場合には術後の症状の回復が見込めると述べているが⁹⁾、自験例では手術所見にて脊髄終糸の速やかな頭側への延長を確認できたにもかかわらず症状の改善は認めなかった。

自験例は夜間頻尿を主訴に受診し、その後尿意切迫が出現し2年の経過で尿閉となったが、早期の治療が術後の回復率に大きく関わる疾患であり早期診断はできなかったのか。夜間頻尿診療ガイドラインの診療アルゴリズムにおいて、夜間頻尿を主訴とする50歳以上の男性に対しては、まず前立腺肥大症として薬物治療を開始し、改善がない場合に専門医への受診を勧めている²⁰⁾。自験例の場合は、治療効果を確認しないまま漫然と抗コリン薬を投与されていた。さらに、蓄尿症状が著明となった際に病態の変化が疑われるべきであったが、迅速な精査は行われなかったことが、治療の遅れにつながった。本症例において病態を早期に把握するには、第1に初診時に、①前立腺腫大がなかったこと、②残尿が認められたこと、③最大尿流量が低下していたこと、④尿意切迫感がなかったことから、低活動膀胱を疑い、続いて排便症状の有無、会陰部・肛門の神経学的所見を確認し、神経因性膀胱を鑑別するべきであった。しかし、日常診療において同様の高齢症例で積極的に病因精査まで考慮することは、泌尿器科専門医でも困難と思われる。第2には、膀胱出口部閉塞が存在しないにも関わらず、短期間で蓄尿症状が出現し尿閉に至った時点で、中枢神経疾患の存在を疑うべきであった。脊髄係留症候群では、膀胱内圧測定および尿流動態検査で排尿筋過活動や排尿筋括約筋協調不全が認められることが多いことが報告されており^{13,21)}、症状増悪時にこれらの所見が得られていれば、積極的に中枢神経疾患を疑うことができたと思われる。

Boy らは、前立腺肥大症の診断で経尿道的前立腺切除術を施行した68歳の男性が術後に症状が悪化したことを契機に直腸診で肛門トーンスの低下・随意収縮の低下を確認し、尿流動態検査にて排尿筋括約筋協調を認めたことから脊髄疾患を疑い、MRIにて脊髄係留症候群と診断した1例を報告している⁸⁾。特に神経学的所見を見直したことが重要であり、自験例においても当科受診時には神経学的異常 (肛門トーンス、肛門随意収縮、球海綿体反射の減弱) を確認しているが、前医での初診時や症状増悪時にも神経学的な異常所見が得られた可能性が高い。膀胱内圧測定・尿流動態検査による評価は施設によっては困難な場合があるが、神

経学的所見（特に直腸診）は泌尿器科医なら容易に得ることができ、その後の精査を勧める上で重要である。排尿障害のために通院している患者が治療抵抗性である場合や症状の増悪はしばしば遭遇することであり、直腸診1つでその後の治療経過が大きく変わる可能性がある。脊髄係留症候群は稀な疾患であるが、早期診断が手術後の治療効果を大きく左右する疾患であり、治療抵抗性の排尿障害患者の中に本疾患が含まれている可能性があることを念頭に置くべきである。

結 語

脊髄係留症候群と診断された高齢者の1例を経験した。成人期発症の脊髄係留症候群の頻度は少ないが、原因不明の下部尿路症状を呈する症例の中に本疾患が含まれていることを認識すべきである。治療抵抗性の排尿障害患者を診療する際には、積極的に神経学的所見を見直し膀胱内圧測定および尿流動態検査で膀胱機能を確認する必要がある。

文 献

- 1) Düz B, Gocmen S, Gönül E, et al.: Tethered cord syndrome in adulthood. *J Spinal Cord Med* **31**: 272-278, 2008
- 2) 武井一城, 鈴木孝一, 木藤宏樹, ほか: 係留解除術を施行した成人脊髄係留症候群の2例. *泌尿紀要* **52**: 841-844, 2006
- 3) Balagura S: Late neurological dysfunction in adult lumbosacral lipoma with tethered cord. *Neurosurgery* **15**: 724-726, 1984
- 4) Ratliff J, Mahoney PS and Kline DG: Tethered cord syndrome in adults. *South Med J* **92**: 1199-1203, 1999
- 5) Yamada S and Loser RR: Adult tethered cord syndrome. *J Spinal Disord* **13**: 319-323, 2000
- 6) 金子慎二郎, 依光悦朗, 西澤 隆, ほか: 成人期に発症した脊髄係留症候群の1例. *整形外科* **54**: 167-170, 2003
- 7) Quinones-Hinojosa A, Gaskary CA, Munnaneni PV, et al.: Split spinal cord malformation in an elderly patient. *Surg Neurol* **61**: 201-203, 2004
- 8) Boy S, Reitz A, Curt A, et al.: A case of undiagnosed tethered cord syndrome aggravated by transurethral prostate resection. *Nat Clin Pract Urol* **2**: 199-204, 2005
- 9) Filler AG, Britton JA, Uttley D, et al.: Adult postrepair myelomeningocele and tethered cord syndrome: good surgical outcome after abrupt neurological decline. *Br J Neurosurg* **9**: 659-666, 1995
- 10) Pang D and Wiberger JE Jr: Tethered cord syndrome in adults. *J Neurosurg* **57**: 32-47, 1982
- 11) Huttman S, Krauss J, Roosen K, et al.: Surgical management of tethered spinal cord in adults: report of 54 cases. *J Neurosurg* **95**: 173-178, 2001
- 12) Iskandar BJ, Fulmer BB, Oakes WJ, et al.: Congenital tethered spinal cord syndrome in adults. *J Neurosurg* **88**: 958-961, 1988
- 13) Wein AJ, Kavoussi LR, Peters CA, et al.: Neuromuscular dysfunction of the lower urinary tract. In: *Campbell-Walsh UROLOGY*. Edited by Wein AJ, Kavoussi LR. 10th ed, pp 1929-1930, Saunders, Philadelphia, 2011
- 14) Lee GY, Paradiso G, Tator CH, et al.: Surgical management of tetherd cord syndrome in adults: indications, techniques, and long-term outcomes in 60 patients. *J Neurosurg Spine* **4**: 123-131, 2006
- 15) Kondo A, Kato K, Sakakibara T, et al.: Bladder dysfunction secondary to tethered cord syndrome in adults: is it curable? *J Urol* **135**: 313-316, 1986
- 16) Haro H, Komori H, Shinomiya K, et al.: Long-term outcomes of surgical treatment for tethered cord syndrome. *J Spinal Disord Tech* **17**: 16-20, 2004
- 17) Yamada S, Won DJ, Siddiqi J, et al.: Tethered cord syndrome: overview of diagnosis and treatment. *Neurol Res* **26**: 719-721, 2004
- 18) Bowman RM, Mohan A, Ito J, et al.: Tethered cord release: a long-term study in 114 patients. *J Neurosurg Pediatr* **3**: 181-187, 2009
- 19) Garcés-Ambrossi GL, McGirt MJ, Jallo GI, et al.: Neurological outcome after surgical management of adult tetherd cord syndrome. *J Neurosurg Spine* **11**: 304-309, 2009
- 20) 西澤 理, 荒木勇雄, 石塚 修, ほか: 夜間頻尿診療ガイドライン. 第1版, pp 1-9, Blackwell Publishing, 東京, 2009
- 21) Giddens JL, Radomski SB, Hirshberg ED, et al.: Urodynamic findings in adults with the tethered cord syndrome. *J Urol* **161**: 1249-1254, 1999

(Received on October 9, 2013)
(Accepted on December 13, 2013)

Editorial Comment

脊髄係留症候群が71歳、男性に発見されるのは、きわめて稀です。この患者での病態は生下時より継続していたと推測するのが妥当であり、過去数十年にわたり脊髄円錐部を圧迫、牽引、虚血状況にして神経障害を惹起したと思います。診断のこつとしては、身長が急激に伸びる思春期の若者が下肢痛、背部痛、排尿症状（夜尿症、排尿困難、尿失禁）を訴えたり、または仙骨部の柔かい膨隆、色素沈着、皮膚陥凹、皮膚洞などの皮膚症状（skin stigmata）や側弯症を伴う場合には、脊髄係留症候群（tethered cord syndrome, tethered spinal cord）を疑うべきです。MRIの画像検査で診断は確定できます。脊髄係留解除術は臨床症状の発症3年以内であれば有効ですが、この時期を逸するとその効果は期待薄となります。正に今回の症例が示す通りです。しかし臨床症状を訴える患者を前にして、外科

的治療術を放棄することもできず，手術の選択は悩ましいものとなりますね。

津島リハビリテーション病院
近藤厚生