

脊髄くも膜嚢腫と血管奇形を合併し、術後一過性 脊髄虚血様発作をくりかえした 1 例

滋賀医科大学脳神経外科

竹市 康裕, 斉藤 晃, 鈴木 文夫

大津市民病院脳神経外科

小 山 素 磨

〔原稿受付：昭和63年 4 月15日〕

A Patient Of Spinal Arachnoid Cyst Associated With Vascular Anomaly Who Showed Repeated Transient Paraparesis After Operation.

YASUHIRO TAKEICHI, AKIRA SAITO, FUMIO SUZUKI and TSUNEMARO KOYAMA

Department of Neurosurgery, Shiga University of Medical Science and
Ohtsu Municipal Hospital, Ohtsu

A case of spinal arachnoid cyst associated with vascular anomaly is reported. It is interesting that this patient showed repeated, transient paraparesis after removal of the arachnoid cyst.

A 58-year-old man noticed weakness of bilateral lower extremities and intermittent claudication 3 months prior to admission. The intermittent claudications and weakness of the lower extremities became progressively worse, and in 3 months he could not walk. Examination revealed spastic paraparesis of bilateral lower extremities. A fading sensory level was present below the T₆ dermatome. Radiological examinations suggested a diagnosis of communicating spinal arachnoid cyst. A total laminectomy of T₄₋₁₁ was performed, and an arachnoid cyst at the levels of T₆ through T_{9/10} was removed. Abnormally dilated vessels containing arterial blood were observed on the dorsal surface of the spinal cord; the abnormal vessels had communications with normal cord vessels. The patient experienced attacks of transient paraparesis three times in 3 weeks postoperatively. Six months later, he could walk without aid.

Key words: arachnoid cyst, spinal vascular malformation, spinal transient ischemic attack

索引語：脊髄くも膜嚢腫，脊髄血管奇形，一過性脊髄虚血発作。

Present address: Department of Neurosurgery, Shiga University of Medical Science, Seta, Ohtsu 520-21, Japan.

は じ め に

脊髄も膜嚢腫は比較的まれな疾患で⁸⁾、中年の男性に多いと言われ^{5,10)}。その発生原因として、先天性要因²⁾の他、外傷、炎症、出血などが考えられている⁹⁾。一方、脊髄の血管異常は、一般に腫瘍と考えられる hemangioblastoma を除いて、先天性奇形とみなされ、胎生期に primitive capillary plexus が異常な発達をした結果と考えられている。

これらの2つの疾患の合併例は、われわれが調べ得た限りでは、文献上、岡ら⁶⁾の報告の他、2, 3を見るのみである¹⁷⁾。われわれの経験した症例は、これらが合併し、術後に一過性脊髄虚血様発作をくりかえした。この症例を報告するとともに、若干の文献的考察を行なった。

症 例

患 者：58才，男，元消防士。

主 訴：歩行障害。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：狭心症，陳旧性心筋梗塞，腎機能障害。

現病歴：1987年3月14日，両下肢に易疲労感をおぼえ，3月16日歩行中，下肢の脱力が急に増強してその場にうずくまったが，数十秒後には再び普通に歩行することが可能となった。その後，午後にとどき間歇性跛行がみられ，その頻度が増加するにつれて，両下肢の大腿部を中心として筋力低下が増悪した。4月中旬には，長時間立位を保つことが困難となり，6月中旬には立て膝も不能となった。

入院時神経学的検査：両下肢の痙性不全対麻痺と T₆以下の知覚障害がみられた。徒手筋力テスト (MMT) では Quadriceps femoris は両側共3/5，Hamstrings は右は3/5，左は4/5であった。Gastrocnemius は両側共4/5，Tibialis anterior も両側共4/5であった。両下肢の筋に軽度の萎縮を認めたが左右差はなかった。T₆以下で，触覚，温度覚，痛覚が低下しており，振動覚は，腸骨稜以下で低下していたが，位置覚には異常はなかった。

両側の膝蓋腱反射およびアキレス腱反射は著明に亢進し，両側の足クローヌスがみられた。病的反射も同様に陽性であったが，膀胱直腸障害はなかった。

神経放射線学的検査：胸椎単純X線撮影では異常は認

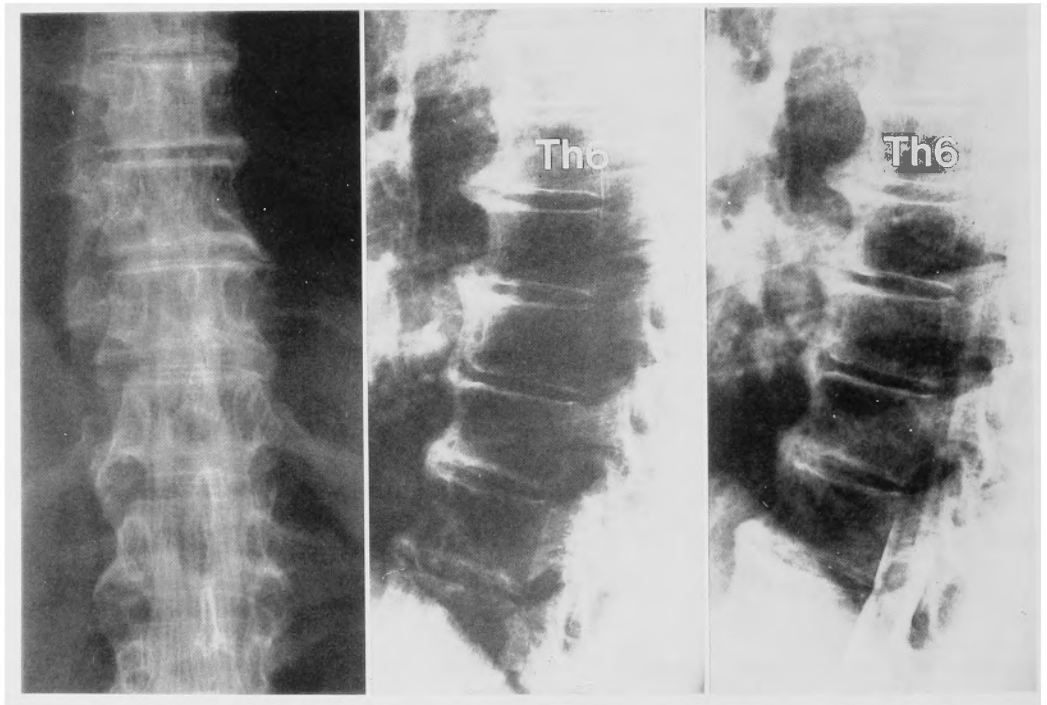


Fig. 1. Myelogram. (A) Antero-posterior view is normal. (B) Lateral view shows an incomplete block at T_{9/10}. (C) Lateral view several minutes later shows no block.

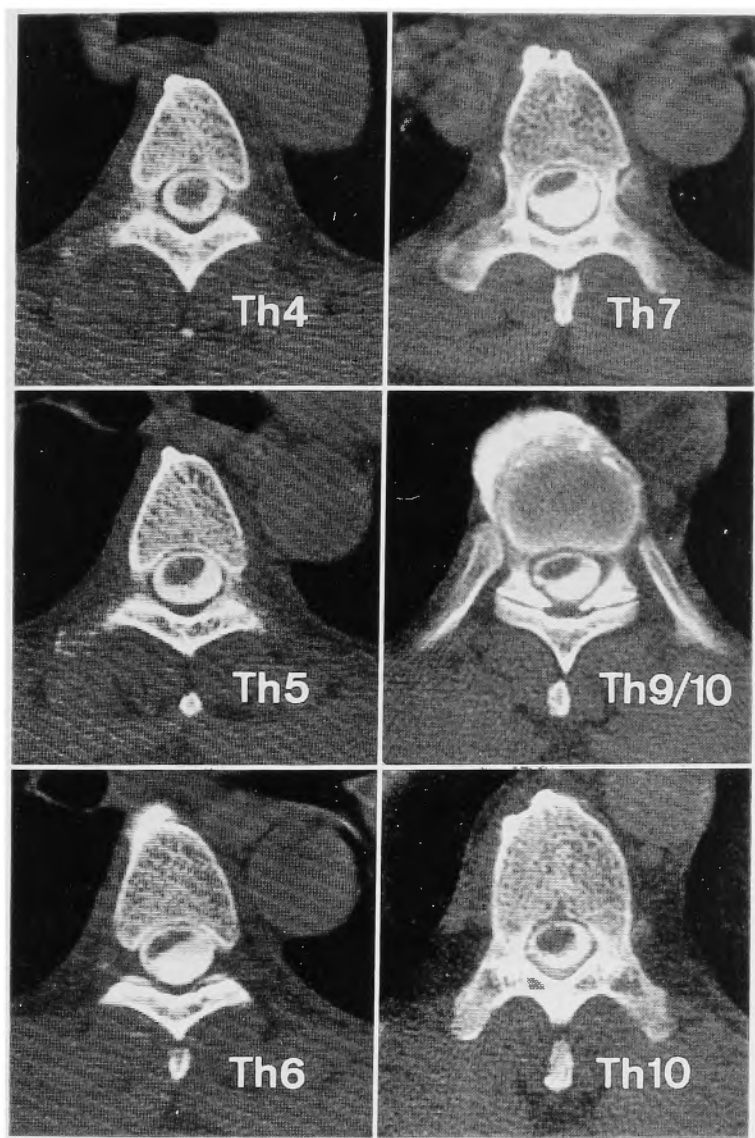


Fig. 2. CT scan shows displacement of the spinal cord from the levels of T₅ to the intervertebral space of T_{9/10}.

められず、脊髄撮影の正面像でも、脊髄神経系や、神経根は正常であった (Fig. 1-A). 側面像では、T₅ から T₉ の脊髄後面に造影不良の部分があったが (Fig. 1-B), 時間をおいて再撮影すると、脊髄後面も均一に造影されていた (Fig. 1-C).

CT ミエログラフィーでは、T₅ から T_{9/10} にかけて、とくに T₉ において、脊髄が強く左下方から右前方へ圧排されていた。また、くも膜下腔はほぼ均一に

造影されていた (Fig. 2). MRI (0.5 T) の T₂ 強調画像では、脊髄撮影や CT ミエログラフィーと同様な脊髄圧排像が認められた。なお、脊髄自身には、腫瘍や血管奇形の存在を思わせる abnormal intensity signal area 等は見られなかった (Fig. 3). 以上より、上端で脊髄腔と交通を有する、T₆ から T_{9/10} におよぶ硬膜内くも膜嚢腫と診断した。

手術所見：全身麻酔下で、T₄～T₁₁ の椎弓切除術を施

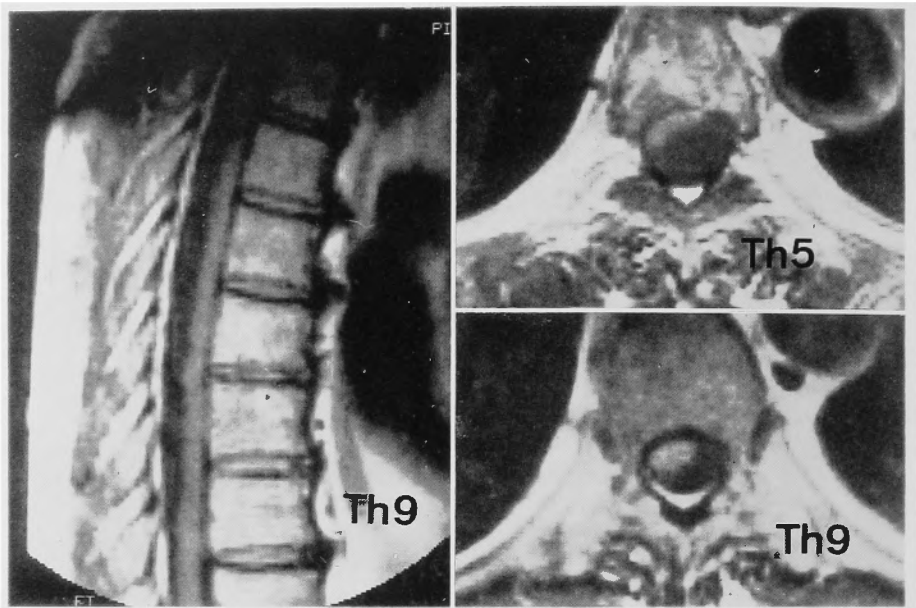


Fig. 3. MRI (T2-weighted image) shows displacement of the spinal cord from the level of T₅ to the intervertebral space of T_{9/10}.

行した。T₇よりT₁₀までの硬膜に正中切開を加えると、上端はT₇、下端はT_{9/10}に達する硬膜内くも膜嚢腫が認められた (Fig. 4-A)。これによって脊髄は右前方へ強く圧排されていたが、脊髄や硬膜との癒着は少なく、容易に剝離できた。

脊髄背側面の軟膜上に、縦走する太く拡張した異常血管があり、これはくも膜嚢腫下縁より強く蛇行し、色調は赤味をおびていた。この異常血管は、その色調と形態より脊髄動静脈奇形 (single coiled type) の導出静脈であると思われた。その両側からは、細い流入動脈が多数みられ、これらが、脊髄の正常血管と交通を有していたため、これらの数本を結紮するに留め、異常血管の切除は行なわなかった (Fig. 4-B)。

病理所見：摘出した嚢腫壁には、炎症細胞の浸潤などの炎症所見や、ヘモジリン沈着等の出血所見は認められず、くも膜細胞と結合組織からなるくも膜嚢腫と診断された。

術後経過：術後第2日目には立て膝も出来るようになり、徐々に筋力の回復が見られた。しかし、術後第6日目、第11日目、第17日目の3回、突然、何の誘因もなく、下肢の脱力がおこった。発作時の下肢の筋力は、Quadriceps femoris が両側2/5、Hamstrings は右は2/5、左は3/5、Gastrocnemius は両側共2/5、Tibialis

anterior は右2/5、左3/5にまで低下した。しかし、第1回の発作では20時間、第2回の発作では5時間、第3回の発作では12時間で、ほぼ発作前の筋力にもどった。いずれの発作に際しても、しびれ等の異常知覚や知覚低下は見られなかった。第3回目を最後に、発作は起らず、4カ月後には、杖で歩行が可能となり、6カ月後には日常生活に不自由なくなるまでに回復した。

考 察

脊髄硬膜内くも膜嚢腫の正確な発生頻度は明らかではないが、一般に比較的な疾患とされており、Lombardi らは290例の脊髄腫瘍のうち、本疾患は1例であったと報告している⁹⁾。われわれが集めた範囲では、144例を数えることができた。これらを集計した結果は、男77例 (53%)、女67例 (47%) で男女差はほとんどない。発症年齢は、30才台から50才台が多く、10才台以下の小児も少なくない (Fig. 5)。発生部位は、頸髄23%、上部胸髄28%、下部胸髄32%、腰髄14% (Fig. 6) で、頸髄のものの50%は脊髄の前面に、胸髄のものの96%は後面に位置する。初発症状は、運動障害と根性疼痛であり、緩解増悪を繰り返しながら、徐々に悪化するものが14%にみられた。

脊髄くも膜嚢腫は、原因から先天性と後天性に分け



Fig. 4. Operative views. (A) The lower end of the arachnoid cyst is found at the level of T_{9/10}. (B) Abnormally dilated vessels are observed after the cyst is removed at the same levels.

られ、先天性のものは脊髄の後面正中にある septum posticum²⁾ や arachnoid trabeculae が発生母地になるといわれ、後天性のものでは、くも膜炎、出血、外傷⁴⁾、手術による硬膜の欠損、などが原因としてあげられて

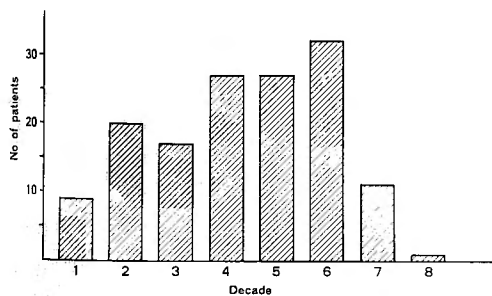


Fig. 5. Age distribution.

いる。

組織学的には、先天性のものは、正常のくも膜細胞よりなり、後天性のものではくも膜の肥厚や、線維の増殖を認め、多胞性であると言われているが、実際には両者間に明瞭な差はなく、病歴より判断される場合が多い。

脊髄動静脈奇形は、脊髄くも膜嚢腫にくらべ、よりしばしば見られる疾患で、Yasargil によれば脊髄腫瘍の4%を占めると言われる¹¹⁾。その成因として、空間占拠性病変などの後天性要因も報告されているが^{3,5)}、一般には、脳動静脈奇形と同様、胎生期に primitive capillary plexus が異常な発達をした結果と考えられている。

この2つの疾患の合併に因果関係があるとするれば、



Fig. 6. Distribution of level of lesion.

脊髄動静脈奇形が、出血、くも膜炎を起こし、くも膜嚢腫を形成するということと、それとは逆に、くも膜嚢腫により、主灌流経路の狭窄を生じ、他の灌流経路が拡張して、異常血管が生じるという二つが考えられる。

今回われわれの症例では、手術所見や病理学的所見では、ともに出血やくも膜炎を証明するものはなく、病歴でもそれらを示唆するものはない。また、後者についても異常血管がくも膜嚢腫の圧迫を直接受ける所に存在したことから、圧迫による灌流異常によって異常血管ができたとは考えにくく、両者の合併は偶然であると考えられる。しかし、silent rupture や強い症状を示さないくも膜炎が以前にあり、それらを原因として、くも膜嚢腫を生じた可能性も十分考えられる。

動静脈奇形とくも膜嚢腫の合併の報告は少く、われわれの集めたものでは、岡らの硬膜外動静脈奇形の報告⁹⁾のみであった。しかし、脊髄くも膜嚢腫に赤い異常血管を認める報告は、いくつかみられ¹⁰⁾、両者の合併は、十分に念頭におくべきである。

われわれの調べた144例中には、脊髄くも膜嚢腫に合併した異常血管が、症状の引き金となった症例はない。これに対し、側頭葉くも膜嚢腫では、嚢胞内に血管を認め、これから嚢胞内に出血し、症状を起すことが言われている。しかし、これは嚢胞内にとりのこされた血管で、本症例の様に軟膜上にみられたものとは

形態に差がある⁹⁾。

本症例においては、術後に一過性虚血様発作を3回おこしているが、それは、くも膜嚢腫の圧迫の除去による血行動態の変化に、脊髄動静脈奇形が大きく関与したものであると考えられる。すなわちその病態は、静脈圧の上昇による血流のうっ滞、遊離血栓などにより、血行動態に変化をきたし脊髄の虚血を引きおこしたものと考えられる。

結 語

脊髄くも膜嚢腫と動静脈奇形を合併し、前者の摘出後3回に亘り一過性脊髄虚血発作をおこした症例を報告した。文献上、144例を集計した結果、くも膜嚢腫は30才から50才台に多いが、小児にも少くなくない。くも膜嚢腫と動静脈奇形との合併の報告はきわめて少ない。

文 献

- 1) 青柳訓夫, 早川 勲, 滝沢利明, 他: 脊髄硬膜内くも膜のう胞の臨床像. 脳外 13: 1205-1212, 1985.
- 2) Ho-Kim J, Shucart WA, Haimovici H: Symptomatic arachnoid diverticula. Arch Neurol 31: 35-37, 1974.
- 3) Kendall BE, Logue V: Spinal epidural angiomatous malformations draining into intrathecal veins. Neuroradiology 13: 181-189, 1977.

- 4) Merland JJ: Intraspinal extramedullary arteriovenous fistulae draining into the medullary veins. *J Neuroradiol* **7**: 271-320, 1980.
- 5) 西浦 巖, 小山素鷹, 久保和親, 他: 脊髄くも膜嚢腫 5 例報告と文献的考察. *脳外* **12**: 1385-1392, 1984.
- 6) 岡 伸幸, 秋口一郎, 亀山正邦, 他: 若年性一側性上肢筋萎縮症(平山病)と類似症候を示した頸部硬膜内くも膜嚢腫の2例. *臨床神経学* **25**: 614-619, 1985.
- 7) Pau A, Viale ES, Turtas S: Spinal intradural arachnoid cysts. *Neurochirurgia* **25**: 19-21, 1982.
- 8) Renato JG, Massimo Z, Danilo L, et al: Spinal intradural arachnoid cyst. *Surg Neurol* **17**: 388-391, 1982.
- 9) 齊藤 晃, 中沢拓也, 松田昌之, 他: 中頭蓋窩くも膜嚢腫と慢性硬膜下血腫の合併. *脳外* **15**: 689-693, 1987.
- 10) Symon L, Kuyama K, Kendall B: Dural arteriovenous malformations of the spine. *J Neurosurg* **60**: 238-247, 1984.
- 11) Yasargil: Intradural spinal arteriovenous malformation, pp 481-523, in: Vinken PJ, Bruyn GW, ed., *Handbook of Clinical Neurology*, Chapter 13, North-Holland Publishing Company, New York, 1974.