

係留解除術を施行した成人脊髄係留症候群の2例

武井 一城¹, 鈴木 孝一^{*1}, 木藤 宏樹¹
内藤 仁¹, 望月 真人²¹沼津市立病院泌尿器科, ²沼津市立病院整形外科TWO CASES OF ADULT TETHERED CORD SYNDROME
WITH SURGICAL TREATMENTKazushiro TAKEI¹, Koichi SUZUKI¹, Hiroki KITO¹,
Hitoshi NAITO¹ and Makondo MOCHIZUKI²¹The Department of Urology, Numazu Municipal Hospital²The Department of Orthology, Numazu Municipal Hospital

We report two cases of adult tethered cord syndrome alleviated by untethering surgery. Case 1 was a 35 year-old female who complained of incontinence while exercising. Radiograph revealed spinal disraphism below the L5 level. In addition, magnetic resonance imaging (MRI) showed low placed conus medullaris at the levels of S2 and sacral intradural lipoma. Further urodynamic studies demonstrated normal sphincteric function and autonomous bladder. Diagnosis resulted in the decision to perform an untethering operation. The patient had increased bladder compliance after surgery for untethering and has continued to be continent 16 months post-operatively. Case 2 was a 27-year old female who complained of apprehension to void and straining during urination. Radiograph demonstrated spinal disraphism below the S2 level and MRI revealed low placed conus medullaris at the level of S5 and sacral intradural lipoma. Urodynamic examination verified normal sphincteric function and autonomous bladder. After complete diagnosis, an untethering operation was performed. Post-operatively, bladder compliance and urinary sensation normalized. Furthermore, the patient spontaneously delivered a baby 3 years after having the untethering operation.

(Hinyokika Kyo 52 : 841-844, 2006)

Key words : Adult, Tethered cord syndrome, Spinal cord, Untethering

緒 言

脊髄終末が何らかの原因によって仙骨尾側に固定係留される状態が存在すると、脊髄が牽引されることで神経障害が生じる。この病態を総称して脊髄係留症候群（以下 TCS と略す）と呼ぶ¹⁾。幼少期に発見されることが多いが、症状が思春期以降に初発または顕著となって発見される成人例²⁻⁴⁾も散見される。今回、われわれは成人後に症状が顕著となり発見された TCS の2例に対し、係留解除手術を施行後、膀胱機能を部分的に改善することができたので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者1 : 35歳, 女性

主訴 : 体動時の尿失禁

既往歴 : 夜尿歴なし。幼少期から下痢時に便失禁あり

家族歴 : 特記すべき事なし

現病歴 : 15歳頃から体動時の尿失禁が出現。成人後ときに夜間尿失禁あり。25歳時、他院で尿失禁にステーマー手術を施行するも術後に尿閉となり解除術を受けた。腹痛で近医受診し、2000年3月1日当科を紹介となる。

現症 : 外観上の身体異常なし。膝蓋腱反射、アキレス腱反射、肛門反射、球海綿体筋反射は正常。仙髄領域は触覚、痛覚とも5/10に低下。

画像検査所見 : DIPで肉柱膀胱および第5腰椎以下の脊椎披裂と仙骨の変形を認めた (Fig. 1A)。MRIにて第2仙骨上縁の低位脊髄円錐とそれに続く肥厚性終糸および脂肪腫を認めた (Fig. 1B)。

排尿機能検査 : 尿道引抜き圧曲線は正常。膀胱内圧測定では、最大尿意 355 ml 時の排尿筋圧 58 cmH₂O でコンプライアンス 3.6 ml/cmH₂O (Fig. 2A)。排尿は完全な腹圧排尿で残尿 185 ml。低コンプライアンスをとまなう排尿筋無収縮であった。

診断 : 脊椎披裂, 仙骨硬膜内脂肪腫に伴う低位脊髄円錐および TCS。

* 現 : 八街総合病院泌尿器科

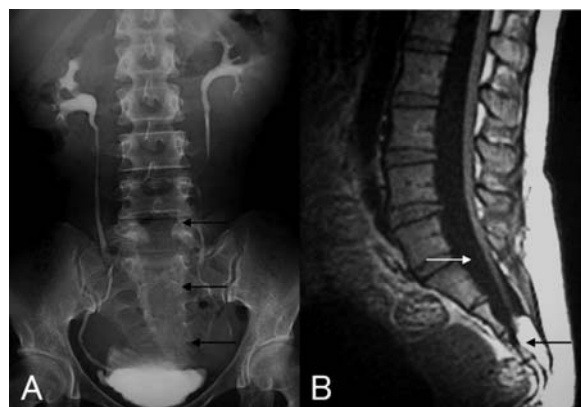


Fig. 1. Case 1. A: DIP shows spinal disraphism below L5 (arrows) and sacral deformity. B: MRI shows low placed conus medullaris (white arrow), thickened filum terminale and intradural lipoma (black arrow).

経過：ウラピジル、塩酸オキシブチニンともに症状悪化をきたし、2000年11月9日から1日3～4回の間欠自己導尿のみの排尿管理となる。以後、体動時および夜間の尿失禁を伴い、腹圧排尿で自尿0～300 ml、残尿100～300 mlにて、変化なく15カ月間経過。2002年2月8日の膀胱内圧測定にて、最大尿意286 ml時の排尿筋圧53 cmH₂Oおよびコンプライアンス2.8 ml/cmH₂Oで、初診時にほぼ同じ結果。保存的加療で自他覚的に改善を認めなかったため、2002年2月22日係留解除術施行。術後も同様の排尿管理をしていたが、術後16カ月頃から尿失禁も含めて自尿が完全に消失し、1回導尿量が300～400 ml前後の自己導尿のみの排尿となった。術後6カ月（2002年8月16日）の膀胱内圧測定では6.8 ml/H₂Oとコンプライアンスの上昇を認め（Fig. 2B）、術後28カ月（2004年6月11日）の膀胱内圧測定では、最大尿意500 ml時の排尿筋圧

26 cmH₂Oおよびコンプライアンス9.3 ml/H₂Oと蓄尿機能が改善したほか、排尿命令に対して実際の排尿はないが排尿筋の収縮も確認された（Fig. 2C）。術前の会陰部知覚低下は術後10/10と正常化した。直腸障害は解除術前後で変化はなかった。

患者2：27歳、女性

主訴：腹圧排尿

既往歴：夜尿歴なし。幼少期から便失禁のことあり。急性膀胱炎を繰り返す。

家族歴：特記すべき事なし

現病歴：17歳から腹圧排尿および腹圧性尿失禁、夜間尿失禁がときどきある。2001年5月31日、近医より急性腎盂腎炎の加療を依頼され当科を紹介となる。

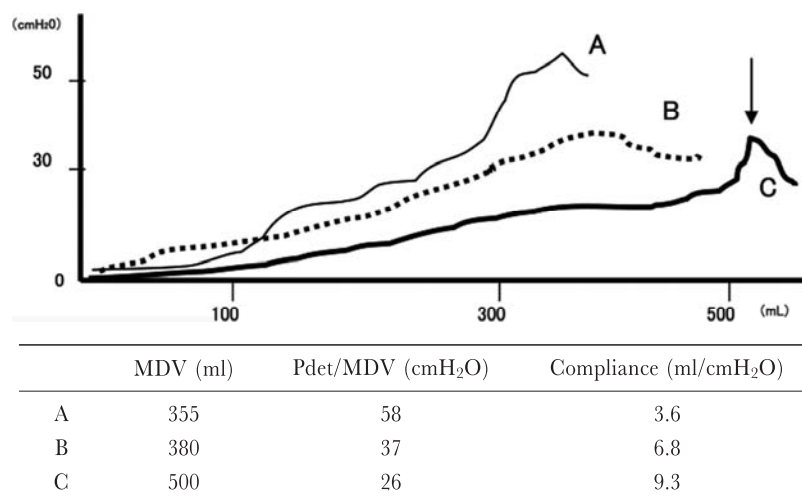
現症：仙骨部皮下脂肪腫を認めるも、それ以外には外観上の身体異常を認めず。膝蓋腱反射、アキレス腱反射は正常。肛門反射、球海綿体筋反射はともにやや低下。仙髄領域知覚は、触覚3/10と低下、痛覚0/10に消失。

画像検査所見：DIPで肉柱膀胱および第2仙椎以下の脊椎披裂を認めた（Fig. 3A）。MRIにて第5腰椎下端の低位脊髄円錐とそれに続く肥厚性終糸および脂肪腫を認めた（Fig. 3B）。

排尿機能検査：尿道引抜き圧曲線は正常。膀胱内圧測定では、最大尿意255 ml時の排尿筋圧50 cmH₂Oでコンプライアンス3.6 ml/cmH₂O（Fig. 4A）。完全な腹圧排尿で残尿150 ml。低コンプライアンスをとまう排尿筋無収縮であった。

診断：脊椎披裂と仙骨硬膜内脂肪腫に伴う低位脊髄円錐およびTCS。

経過：ウラピジル、塩化ベタネコールともに症状悪化をきたし、2001年7月19日から1日3～4回の間欠自己導尿のみの管理となる。尿意不明瞭のため時間排



MDV: maximum desire to void. Pdet/MDV: detrusor pressure at MDV.

Fig. 2. Case 1. Cystometry. A: before operation. B: 6 months after operation. C: 28 months after operation. The arrow indicates detrusor contraction.

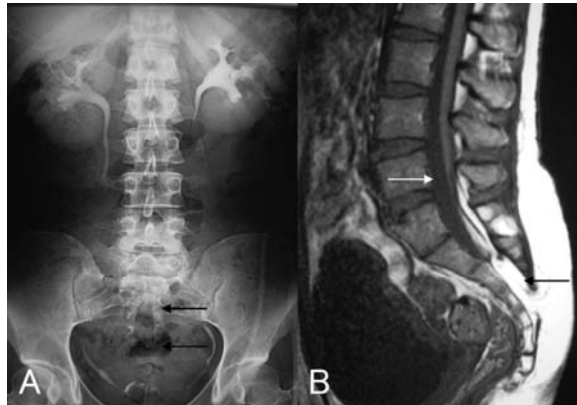


Fig. 3. Case 2. A: DIP shows spinal disraphism below S2 (arrows). B: MRI shows low placed conus medullaris (white arrow), thickened filum terminale and intradural lipoma (black arrow).

尿に近く、残尿 60~400 ml だが、しばしば蓄尿量が 500 ml を超えていた。7 カ月間経過観察するも排尿状況に変化がないため、2002年2月19日、係留解除術施行。術後から自尿は消失したが尿意が明瞭となったため尿意による導尿に切り替え、1 回導尿量が 400 ml 前後の完全に自己導尿のみの排尿となった。術後 24 カ月（2004年2月27日）の膀胱内圧測定 (Fig. 4B) では、最大尿意 272 ml 時の排尿筋圧 9 cmH₂O で、コンプライアンス 16.9 ml/cmH₂O と、蓄尿機能の正常化を認めたが、排尿筋収縮は出現しなかった。術前の会陰部知覚低下は触痛覚とも 5/10 に改善。2005年5月16日、第1子を碎石位にて自然分娩したが、とくに問題はなかった。

考 察

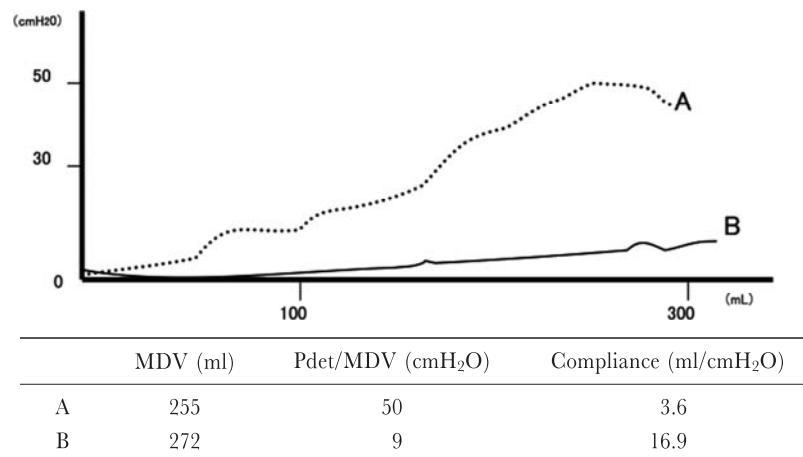
脊髄の係留を生じる病態としては、肥厚性緊張性終糸、硬膜内脂肪腫、脊髄膜瘤またはその手術後の線維性癒着など多彩な原因が報告^{3, 4)}されている。病態

の本質は係留された脊髄の伸展による障害であるため、低位脊髄円錐は必須ではなく、脊髄円錐の位置が正常であっても係留されていれば伸展刺激によって TCS が発症しうる^{5, 6)}。Kondo ら⁵⁾は形態学的に TCS を 4 つの型に分類している。Grade1 では脊髄円錐は正常位置で肥厚のない終糸が緊張するのみ、grade 2 は脊髄円錐が正常位置に近く肥厚性緊張性終糸を認めるもの、grade 3 は低位脊髄円錐および肥厚性緊張性終糸を認め、grade 4 は低位脊髄円錐が脂肪腫や線維性癒着などで硬膜下端に係留されているものである。自験例は 2 例とも grade 4 であった。

成人 TCS は発症様式にて 2 つのタイプに分類される^{3, 7)}。1 つ目のタイプは小児期からの神経兆候が成人期に進行する場合、2 つ目は成人期に初めて発症するタイプである。自験例は 2 例とも 1 つ目のタイプであった。成人 TCS の症例では、小児期にはまだ脊髄牽引の影響が小さく神経兆候がさほどではなく、加齢の過程で繰り返される牽引刺激によるダメージの蓄積効果が働き^{3, 8)}、場合によっては過度の急激なる脊髄伸展^{3, 4)}という‘最後の一撃’を受けて成人期に発症すると考えられている。成人発症例の過半数で過度の伸展による発症エピソードが判明しうるとされ、それらの例では交通事故、出産時の碎石位や過度の屈伸運動が多い^{3, 4)}。

TCS に生じる兆候として代表的なものは、知覚異常、下半身の痛み、下肢変形、膀胱直腸障害、運動機能障害、仙骨部の皮膚異常など多彩である^{2-5, 7)}。成人 TCS ではこのうち皮膚異常と下肢変形の率が低く^{2-4, 7)}、痛みが多く認められる^{2, 3)}。膀胱機能障害は、膀胱内圧測定で無収縮性、低活動性、過活動性とすべてのタイプを生じる^{3, 5)}。

TCS の根本的な治療は係留解除術のみである⁹⁾。ただし、全例で係留解除術によって神経兆候が回復するわけではない²⁻⁹⁾。体性神経にかかわる症状、すな



MDV: maximum desire to void. Pdet/MDV: detrusor pressure at MDV.

Fig. 4. Case 2. Cystometry. A: before operation. B: 24 months after operation.

わち、痛みや知覚異常、歩行障害などは術後かなり早期に高い確率で回復する例が多い^{2, 3, 7, 10, 11)}。膀胱機能障害に関しては、ほとんどが回復するとの報告^{10, 11)}も散見するが、大半の報告が体性神経兆候ほどには回復しないとしている^{2, 3, 5, 7)}。過活動排尿筋^{3, 12)}、発症から係留解除術までの期間が短い⁵⁾、Kondo ら⁵⁾の分類でいう grade が 1 または 2 の例^{5, 6, 10, 11)}で回復率が高いとされる。とくに、grade 1 または 2 における報告^{5, 6, 10, 11)}では体性神経兆候も膀胱直腸障害もほぼ全例が回復または改善している。自験例は罹病期間が長く grade 4 かつ無緊張膀胱であったため、解除術による劇的改善はなかった。しかし、膀胱コンプライアンスや尿意の改善を認め、尿失禁が消失したことは生活の質を向上させ得たと考える。

TCS は脊椎披裂に合併することが多い^{3, 6, 10, 11)}。潜在性脊椎披裂は泌尿器科医が偶発的に遭遇するレントゲン所見であり、そのすべてが神経兆候を伴うわけではない¹³⁾。ただし、原因不明の神経因性膀胱に脊椎披裂を認める症例では TCS を念頭に入れるべきであろう。その際は脊髓 MRI が非侵襲的かつ簡便である¹⁴⁾。MRI にて脂肪腫や肥厚性終糸、低位脊髓円錐を認めれば TCS の有力な根拠となる。ただし、一部の TCS では、脊椎披裂を伴わず^{10, 13)}、MRI 上低位脊髓円錐も肥厚性終糸も認めない緊張性終糸のみの例¹⁰⁾が存在することが報告されている。このことは臨床上 TCS の診断を困難にする要素である。

結 語

係留解除術を施行して膀胱機能の部分的改善が認められた成人 TCS の 2 例を報告した。

本論文の要旨は第56回日本泌尿器科学会西日本総会にて発表した。

文 献

- 1) 大井静雄：Tethered cord syndrome—手術適応の混乱と手術術式に関するコンセンサス—。

- Neurosurg **13** : 161-168, 1994
- 2) 山村明範, 丹羽 潤, 端 和夫, ほか：成人期に発症したTethered Cord Syndrome—1 治験例と56 文献例—。脳神経外科 **17** : 69-73, 1989
- 3) Pang D and Wilberger Jr JE: Tethered cord syndrome in adults. J Neurosurg **57** : 32-47, 1982
- 4) Caruso R, Cervoni L, Fiorenza F, et al.: Occult dysraphism in adulthood: a series of 24 cases. J Neurosurg Sci **40** : 221-225, 1996
- 5) Kondo A, Kao K, Kanai S, et al.: Bladder dysfunction secondary to tethered cord syndrome in adults: is it curable? J Urol **135** : 313-316, 1986
- 6) Warder DE and Oakes WJ: Tethered cord syndrome and the conus in a normal position. Neurosurg **33** : 374-378, 1993
- 7) Yamada S and Lonser RR: Adult tethered cord syndrome. J Spinal Disord **13** : 319-323, 2000
- 8) Koyanagi I, Iwasaki Y, Hida K, et al.: Surgical treatment supposed natural history of the tethered cord with occult spinal dysraphism. Childs Nerv Syst **13** : 268-274, 1997
- 9) Mapstone TB: Management of tethered spinal cord. Neurosurg Quart **4** : 82-91, 1994
- 10) Nazar GB, Casale AJ, Roberts JG, et al.: Occult filum terminale syndrome. Pediatr Neurosurg **23** : 228-235, 1995
- 11) Wehby MC, O'Hollaren PS, Abtin K, et al.: Occult tight filum terminale syndrome: results of surgical untethering. Pediatr Neurosurg **40** : 51-57, 2004
- 12) Fone PD, Vapnek JM, Litwiller SE, et al.: Urodynamic findings in the tethered spinal cord syndrome: does surgical release improve bladder function? J Urol **157** : 604-609, 1997
- 13) 中村敬彦：77症例の診療経験に基づく Tethered spinal cord syndrome (脊髓係留症候群) の診断および治療。日整会誌 **58** : 1237-1251, 1984
- 14) Hall WA, Albright AL and Brunberg JA: Diagnosis of tethered cords by magnetic resonance imaging. Surg Neurol **30** : 60-64, 1988

(Received on October 11, 2005)

(Accepted on May 29, 2006)