

頸椎の歯突起後方偽腫瘍に対して椎弓後方除圧術が奏功した 1 例

立花 久嗣^{1)3)*} 影山 恭史¹⁾ 野口 隆²⁾
 米田 行宏¹⁾ 市川 桂二¹⁾

要旨：約 20 年の競技用自転車の愛好歴のある 63 歳男性が、亜急性に進行する頸髄症による後頸部痛、両上肢の運動障害、痙性歩行を生じた。MRI では、頸椎最上部の環軸椎後方に腫瘍をみとめ、頸髄上部を圧迫していた。骨腫瘍、骨髄炎、リウマチ疾患を示唆する所見はなく、歯突起後方の偽腫瘍と診断した。腫瘍摘出をともなわない椎弓切除術のみを施行した。その後、神経症状は軽快し、1 年後の MRI では腫瘍は軽度縮小していた。本疾患は、環軸椎靭帯の慢性的な機械的刺激による靭帯肥厚が発生要因と推定されており、除圧術のみにより頸髄の圧迫が軽減され症状の改善が期待できる。

(臨床神経 2013;53:33-36)

Key words：脊髄、頸髄症、偽腫瘍、歯突起

はじめに

頸椎最上部の歯突起後方の偽腫瘍 (retro-odontoid pseudotumor) は、軸椎歯突起の後方に形成される非腫瘍性腫瘍の 1 つで、60 ~ 70 歳代に多い^{1)~10)}。本疾患は、環軸椎靭帯の慢性的な機械的刺激による靭帯肥厚が発生要因と推定されているが、環軸関節の不安定性をともなわないばあいは除圧術のみで頸髄の圧迫が軽減されて症状の改善が期待できる疾患である。これまで整形外科や脳神経外科領域での報告^{1)~10)}があるが、神経内科医も治療可能な疾患として認識しておくことが重要であろう。

症 例

症例：63 歳，男性，無職

主訴：後頸部痛，両上肢の脱力，歩行障害

既往歴：高尿酸血症，脂質異常症。

家族歴：特記なし。

病歴：約 20 年前から競技用自転車に乗るのが趣味で、週に 2 回は 100 km 程度走る事があった。数年前より自転車で走行中に後頸部痛を自覚し、自転車を降りる際に症状が悪化していた。200X 年 10 月上旬から右手でコップを持つと重く、洗顔時には両手が重く感じるようになり、10 月下旬にはボタンがかけづらい、右手での書字が困難になり、歩行もやや不安定になってきた。

一般現症：身長 165 cm，体重 58 kg，体温 36.3°C，血圧

132/75 mmHg，脈拍 56/分・整だった。胸部・腹部に異常所見はなかった。

神経学的所見：意識は清明，脳神経に異常はなかった。左方向に頭部を回旋すると左側の後頸部痛をみとめたが、同部位の圧痛や叩打痛はなく、Jackson および Spurling test は陰性だった。左側優位に両上肢の近位筋（三角筋・上腕二頭筋・上腕三頭筋）および母指対立筋に軽度（MMT = 4 程度）の筋力低下、左手指の巧緻運動障害と両下肢遠位筋（前脛骨筋・ヒラメ筋）にも軽度（MMT = 4 程度）の筋力低下をみとめた。握力は右 25 kg，左 20 kg だった。左側 C3 ~ 4 髄節レベルの温痛覚低下があり、左下肢で振動覚の軽度低下をみとめた。Romberg 徴候が陽性で体幹部が左側へ傾斜した。深部腱反射は左側の上下肢で亢進していた。両下肢の筋緊張は軽度亢進しており、歩行は自立していたが痙性だった。病的反射はなかった。

検査所見：一般血液および生化学検査は異常なかった。リウマチ因子や抗核抗体などの各種の免疫検査、さらに腫瘍マーカーはすべて陰性だった。髄液検査は、細胞数は 1/mm³，蛋白 77 mg/dl，髄液細胞診では悪性細胞はみとめなかった。末梢神経伝導検査は異常なく、体性感覚誘発電位では左側の正中神経刺激で N13，N13 ~ N20 において潜時の軽度延長をみとめた。

画像検査：頸椎レントゲンで C6/7 に骨棘形成をみとめるのみで、環軸椎関節の不安定性や骨折はなかった。頸椎 CT では歯突起と環椎の外側部に両側性に囊腫様陰影をみとめた。脳 MRI には異常なかった。頸椎 MRI (3 テスラ) の矢状断像では、歯突起後方に T₁ 強調像で脊髄と等信号、T₂ 強

*Corresponding author: 神戸大学医学部附属病院神経内科 [〒 650-0017 兵庫県神戸市中央区楠町 7 丁目 5-2]

¹⁾ 兵庫県立尼崎病院神経・脳卒中センター神経内科

²⁾ 兵庫県立尼崎病院整形外科

³⁾ 神戸大学医学部附属病院神経内科

(受付日：2012 年 2 月 27 日)

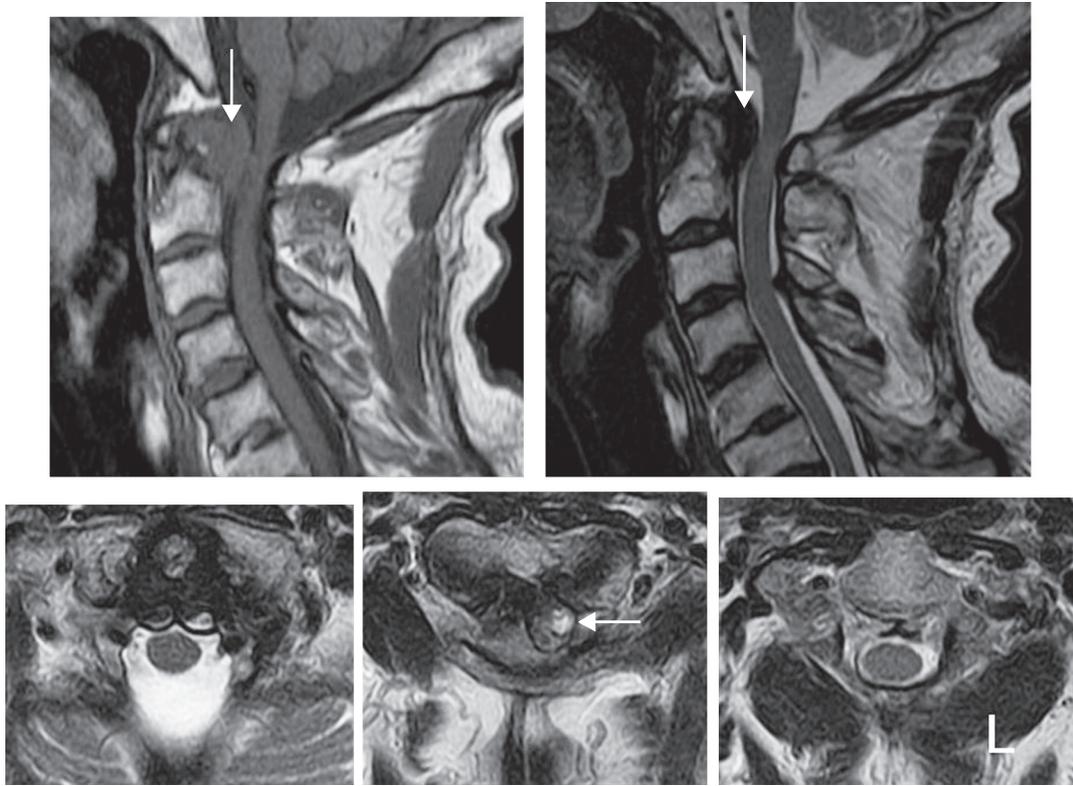


Fig. 1 Pre-operative cervical magnetic resonance imaging.

Sagittal T₁-weighted (left upper) and T₂-weighted (right upper) images showing a mass lesion (arrow) at the retro-odontoid region and upper cervical cord degeneration. On the axial T₂-weighted image (lower center), the mass lesion with partially high signal intensity, compressing predominantly to the left side of the spinal cord. The spinal cord at the rostral (left lower) and caudal (right lower) levels are both intact. The mass lesion shows no enhancing area (not shown).

調像で低信号を示す腫瘍がみとめられた (Fig. 1)。T₂強調水平断像では、腫瘍は一部高信号域を示す部位があり、左前方から頸髄を圧迫していた。腫瘍による椎体の浸食像はなく、ガドリニウム造影効果はなかった。脊髓造影では歯突起後方で硬膜管圧排像をみとめた。全身CTでは悪性腫瘍をうたがう所見はみとめず、全身ガリウムシンチ検査では、頸椎病変部位をふくめ集積異常部位はなかった。

入院後経過：原発性ないし転移性骨腫瘍、骨髄炎、リウマチなどがうたがわれたが、全身をふくめた各種検査から否定的であり、歯突起後方の偽腫瘍がもっともうたがわれた。環軸椎関節の不安定性がなかったため、整形外科において環椎後弓切除による後方除圧術のみを施行した。腫瘍の生検や摘出は施行しなかった。術後には、左頸部の痛み、両手の脱力および痙性歩行は消失した。その後、神経症状の再燃はなく、術後1年後では日常生活は自立レベルを保持しており、歩行障害もほとんどなく、書字障害もほぼ改善していた。術後1年の頸椎MRIでは、腫瘍の増大はなく、わずかに縮小している部位もみとめた (Fig. 2)。

考 察

歯突起後方に発生する腫瘍性疾患には腫瘍性と非腫瘍性がある。非腫瘍性疾患には、関節リウマチによるパンヌスとして形成されるもの、透析患者によるアミロイド沈着やピロリン酸カルシウムの沈着によっても形成されるもの、慢性環軸関節不安定による環軸椎靭帯の微小損傷の修復機転による靭帯の肥厚が発生要因とされる歯突起後方偽腫瘍などがある^{1)~9)}。本例では、関節リウマチ、透析、偽痛風の既往はなく、頸椎MRI検査において腫瘍はT₂強調像において一部に高信号域をみとめたが、大部分が低信号域を示しており、腫瘍性病変や炎症性疾患では高信号を呈することが多く⁷⁾、またガリウムシンチ検査で腫瘍部位の集積像をみとめなかったことから、活動性のある感染性炎症や悪性腫瘍は否定的だった。以上より、本例を歯突起後方偽腫瘍と臨床診断した。

本例の歯突起後方偽腫瘍の成因として、病歴から競技用自転車に長期間乗ることで強いらられる頸部の後屈姿勢や運動が、環軸関節靭帯への慢性的な機械的ストレスとなり腫瘍形成の誘因となった可能性が考えられた。本例では、病理診断

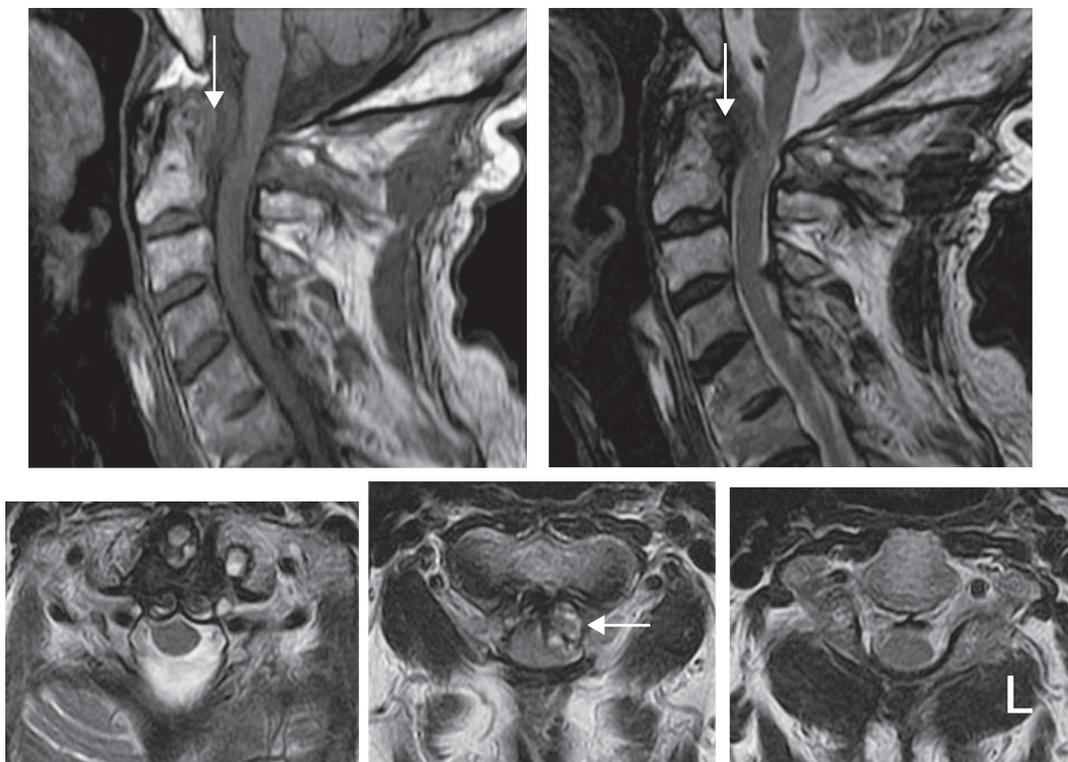


Fig. 2 Cervical magnetic resonance imaging one year after surgery. The size of pseudo-tumor (arrow) has slightly diminished on the sagittal T₁- and T₂-weighted (left and right upper) images and also on the axial T₂-weighted image (lower center). The spinal cord degeneration on the T₂-weighted image (right upper) is unchanged.

はおこなわれていないが、齒突起偽腫瘍の組織像は線維性軟骨組織とされており、軟骨様細胞が多数みとめられるばあいもあるが、炎症細胞はほとんどみとめていない¹⁾⁷⁾¹⁰⁾。一方で、非リウマチ性患者における環軸椎脱臼にともない形成された偽腫瘍では、病理学的に腫瘍細胞をふくまず、膠原線維による癒痕組織をともない環軸椎不安定による機械的刺激で形成された滑膜の炎症所見をみとめ、リウマチ患者にみとめられる組織像に似ているとする報告⁶⁾もあり、その組織像は一様ではない。

齒突起後方偽腫瘍の治療は、外科手術として初期には腫瘍摘出術¹⁾⁷⁾が多かったが、最近では後方除圧固定術、後方除圧術のみのばあいが多い^{2)~10)}。齒突起後方偽腫瘍には環軸椎関節の不安定性をとまなうばあいがあるが、頸椎レントゲン側面機能撮影でADI (atlanto-dental interval) が4 mm以下で不安定性がないばあいは後方除圧術のみで症状が軽減したとする報告がある^{2)~4)7)9)10)}。これは除圧により硬膜管が後方に変位することで髄液の拍動による腫瘍への刺激が軽減されるため、除圧術だけで偽腫瘍が縮小すると考えられている。本例も環軸椎関節の不安定性はなく、除圧術のみで症状が軽快した。

本疾患は治療可能な病態であるにもかかわらず骨腫瘍などと診断されて治療の機会を失う可能性がある。進行性の頸髄

症において、手術のみで良好な転帰が期待できる本症を常に考慮することが重要であろう。

本論文の要旨は、第92回日本神経学会近畿地方会（2010年6月、大阪）において報告した。

謝辞：本症例の診断・治療を共有した兵庫県立尼崎病院の腎臓内科（現在）の山本耕治郎先生に深謝します。

※本論文に関連し、開示すべきCOI状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

文 献

- 1) 吉田宗人, 玉置哲也, 川上 守ら. 環軸関節不安定症に伴う齒突起後方腫瘍の病態と治療. 臨整外 1995;30:395-402.
- 2) 東福勝宏, 米 和徳, 林 協司ら. 軸椎齒突起後方偽腫瘍の治療経験—3例—. 整外と災外 2005;54:737-741.
- 3) Yamaguchi I, Shibuya S, Arima N, et al. Remarkable reduction or disappearance of retroodontoid pseudotumors after occipitocervical fusion; report of three cases. J Neurosurg Spine 2006;5:156-160.
- 4) Suetsuna F, Narita H, Ono A, et al. Regression of retroodontoid pseudotumors following C-1 laminoplasty. Report of three cases. J Neurosurg Spine 2006;5:455-460.
- 5) Matsumoto T, Takada S, Tsujimoto K, et al. Enlarging retro-

- odontoid pseudotumor after expanding cervical laminoplasty in the presence of kyphosis. *Spine J* 2006;6:228-232.
- 6) Ito K, Sakai K, Yako T, et al. Atlantoaxial dislocation associated with a mass in the extradural craniovertebral junction unrelated to rheumatoid arthritis. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2007;47:182-185.
- 7) Chikuda H, Seichi A, Takeshita K, et al. Radiographic analysis of the cervical spine in patients with retro-odontoid pseudotumors. *Spine* 2009;34:E110-114.
- 8) Yamazaki M, Okawa A, Mannoji C, et al. C1 dome-like laminotomy and posterior C1-C2 polyaxial screw-rod fixation for a patient with cervical myelopathy due to a retro-odontoid pseudotumor. *J Clin Neurosci* 2009;16:99-103.
- 9) 黒島 聡, 野原博和, 我謝猛次ら. 軸椎歯突起後方偽腫瘍の治療経験. *整形外科と災害外科* 2009;58:254-260.
- 10) Tanaka S, Nakada M, Hayashi Y, et al. Retro-odontoid pseudotumor without atlantoaxial subluxation. *J Clin Neurosci* 2010;17:649-652.

Abstract

Cervical retro-odontoid pseudo-tumor treated with posterior decompression surgery

Hisatsugu Tachibana, M.D.¹⁾³⁾, Yasufumi Kageyama, M.D.¹⁾, Takashi Noguchi, M.D.²⁾,
Yukihiro Yoneda, M.D.¹⁾ and Keiji Ichikawa, M.D.¹⁾

¹⁾Division of Neurology, Hyogo Prefectural Amagasaki Hospital

²⁾Division of Orthopedical Surgery, Hyogo Prefectural Amagasaki Hospital

³⁾Medicine of Neurology, Kobe University Hospital

A cervical retro-odontoid pseudo-tumor, which is considered as a reactive fibrocartilaginous mass, is a rare condition in cervical myelopathy. A 63-year-old male, with repeated neck axial movements by a long-term leisure-time cycling, developed subacute myelopathy. Cervical MRI showed a mass lesion at the retro-odontoid region, compressing to the upper spinal cord. After detailed systemic and local examinations that ruled out primary or metastatic malignancy and inflammatory disorders such as rheumatoid arthritis or chronic kidney diseases, a retro-odontoid pseudo-tumor was diagnosed clinically. The patient underwent posterior C1-laminectomy without tumor resection and its pathological confirmation. After the surgery, his neurological signs of cervical myelopathy improved, and a follow-up MRI one year later showed a mild reduction of the tumor size. The neuro-physicians should recognize the relatively benign pseudo-tumor in cervical myelopathy, because the tumor size usually shows no further enlargement or regression only after decompression surgery without tumor resection.

(*Clin Neurol* 2013;53:33-36)

Key words: cervical cord, myelopathy, retro-odontoid pseudo-tumor, spine