

AMCoR

Asahikawa Medical College Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

てんかんをめぐって (1992) 12巻:101~105.

けいれん発作重積で発症した悪性神経膠腫の幼児例

高橋悟、宮本晶恵、伊藤淳一、沖潤一、長和彦、遠山義
浩、田中達也、村岡俊二

けいれん発作重積で発症した悪性神経膠腫の幼児例

旭川医大小児科

高橋 悟 宮本 晶恵 伊藤 淳一
沖 潤一 長 和彦

旭川医大脳神経外科

遠山 義浩 田中 達也

旭川医大附属病因病理部

村岡 俊二

A case of malignant glioma with onset of status convulsions

Satoru Takahashi, Akie Miyamoto, Junichi Ito, Junichi Oki, Kazuhiko Cho,
Yoshihiro Tohyama, Tatsuya Tanaka, Shunji Muraoka

Department of Pediatrics, Department of Neurosurgery, Department of Pathology
Asahikawa Medical College. Nishikagura 4-5-3-11. Asahikawa 078

1. はじめに

けいれん発作重積の原因として、成人では脳腫瘍が約20%と多いが¹⁾、乳幼児では髄膜炎・脳炎が最も多く、脳腫瘍は少ない²⁾。我々は、化膿性髄膜炎の既往を有し、画像診断上、脳膿瘍との鑑別が難しかった悪性神経膠腫の幼児例を経験した。初発症状はけいれん発作重積で、術中の皮質脳波よりてんかん源性が強い腫瘍と考えられた。診断上、経時的に撮ったMRIが有用であったので報告する。

1. 症 例

〈症 例〉 2歳7か月男児（1988年2月23日生まれ）

〈主 訴〉 発熱、けいれん発作重積

〈既往歴〉 3か月時に、B群溶連菌による化膿性髄膜炎に罹患した。その経過中に左前頭部に硬膜下水腫を併発したが、11か月時には消失していた。

〈現病歴〉 1990年9月12日、38℃の発熱に伴い突然眼球を左に偏位させ、両肩のミオクロニーから左上下肢の間代性けいれんとなる発作が50分間持続したため、富良野協会病院小児科に入院した。入院時の頭部CTで右前頭葉に嚢状陰影があったため旭川医科大学小児科に転院した。

〈入院時現症〉 意識は清明で、明らかな神経学的異常はなく、うっ血乳頭もなかった。咽頭・鼓

膜に発赤なく、胸部X-P上で異常陰影はなかった。

〈入院時検査所見〉 入院時の検査結果は表1にまとめた。白血球増多はなかったが、CRPは5.6 μ g/mlと陽性、赤沈は1時間値55mmと亢進していた。髄液には細胞増多なく、蛋白・糖も正常範囲内であった。血液、髄液・尿の培養は共に陰性であった。

表1 入院時検査所見

WBC	7100 / μ l	TP	6.8 g/dl	alb.	65.9 %
Seg	60 %	Alb	4.5 g/dl	α 1-glb	3.8 %
Stab	3 %	CHE	412 IU/l	α 2-glb	12.3 %
Eos	1 %	ALP	673 IU/l	β -glb	8.3 %
Baso	0 %	GOT	32 IU/l	γ -glb	9.7 %
Mono	5 %	GPT	16 IU/l		
Lymph	30 %	LDH	553 IU/l	髄液所見 ;	
At.lymph	1 %	CK	129 IU/l	細胞数	2/3
RBC	451万/ μ l			糖	57 mg/dl
Hb	11.7 g/dl	IgG	824 mg/dl	蛋白	16 mg/dl
Ht	35.7 %	IgA	43.8 mg/dl		
Plt	29.6万/ μ l	IgM	144 mg/dl	細菌検査 ;	
ESR	55 mm/ 82mm			血液培養 :	陰性
CRP	5.6 μ g/ml			髄液培養 :	陰性

〈画像診断〉 頭部単純X-Pでは石灰化像・骨破壊像等は認めなかった。CTで右前頭葉に周囲に高吸収域を伴った嚢状陰影を認めた。同部位は、Magnetic Resonance Imaging (MRI) のT1強調画像で低信号域として、T2強調画像で高信号域として認められ、Single Photone Emission Computed Tomography (SPECT) では集積低下像として認められた (図1)。

〈入院後の治療と経過〉 発熱、CRP陽性、赤沈の亢進等の炎症反応があり、頭部CTで嚢状陰影が認められたことより、脳膿瘍を疑い抗生物質 (SM7338) と抗けいれん剤 (フェニトイン) による治療を開始した。その後は解熱しCRP・赤沈も改善し、頭痛・けいれんなく元気に経過していた。しかし、MRI (Gadolinium造影) のT1強調画像の経過をみると、発症1か月後で腫瘍の縮小傾向はなく、さらに2か月後には増大する傾向が認められ、内部構造も不均一となった。(図2)。脳膿瘍と考え摘出術を行なった。

〈脳波所見〉 頭皮上脳波を図3に示したが、右前頭域に位相の逆転した50 μ Vの鋭皮が散発していた。また、Neuroleptanalgesia (NLA) 麻酔下で腫瘍直上の皮質脳波を記録した (図4)。手術中の発作時脳波で、腫瘍の一部に局限した500 μ Vの高電位律動波を確認した。腫瘍摘出後の皮質脳波および頭皮上脳波では発作波を認めず、患児はその後けいれん発作を起こしていない。以上のことから、本症例の初発症状であるけいれん発作重積の焦点は、右前頭葉の腫瘍の一部にあったと判断できた。

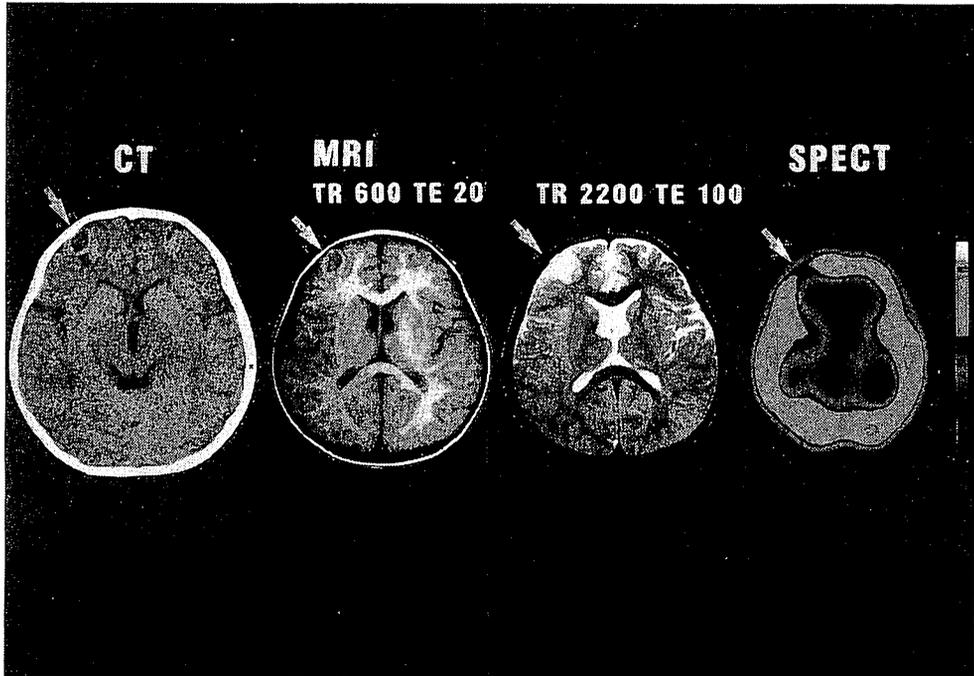


図1 入院時の造影CT・MRI・SPECT
 CTでは、右頭葉に周囲に高吸収域を伴った嚢状陰影を認めたが、造影効果は明らかではなかった。MRIでは、T1強調画像で低信号域として、T2強調画像で高信号意気として認められた。SPECTでは、集積低下像として認められた。

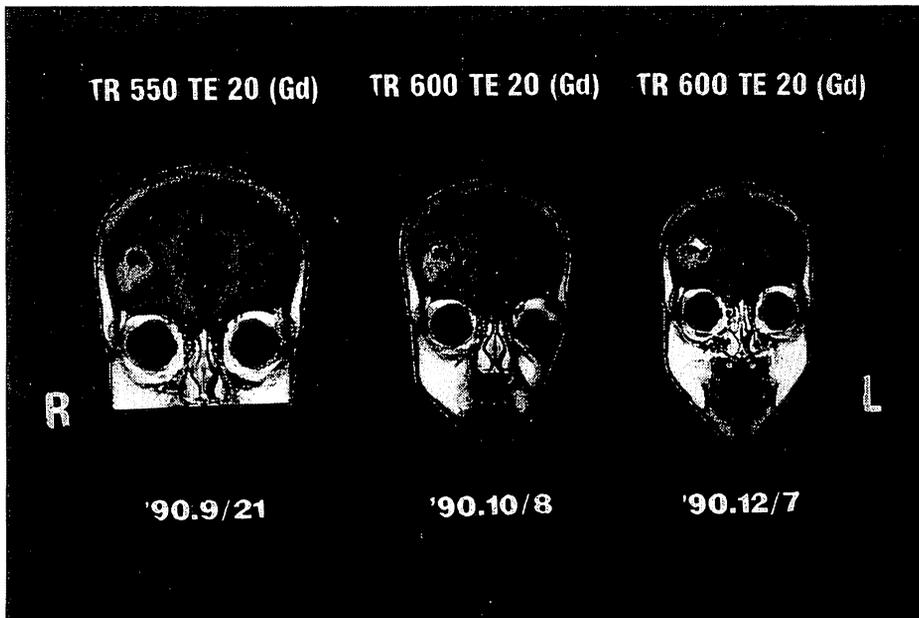


図2 MRI (Gd造影) のT1強調画像の経過
 発症1か月後には、陰影の縮小傾向なく、さらに2か月後には増大傾向を示し内部構造も不均一となった。

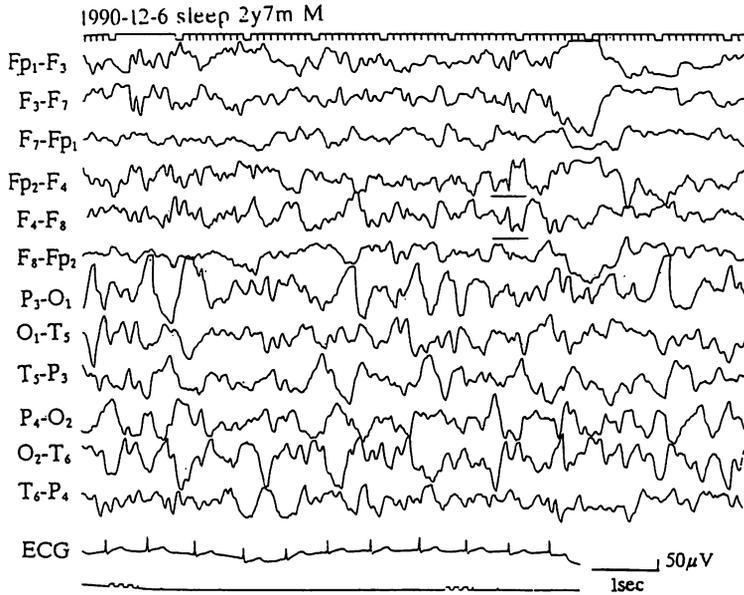


図3 頭皮上脳波
右前頭域に位相の逆転した50 µVの鋭波が散発していた。

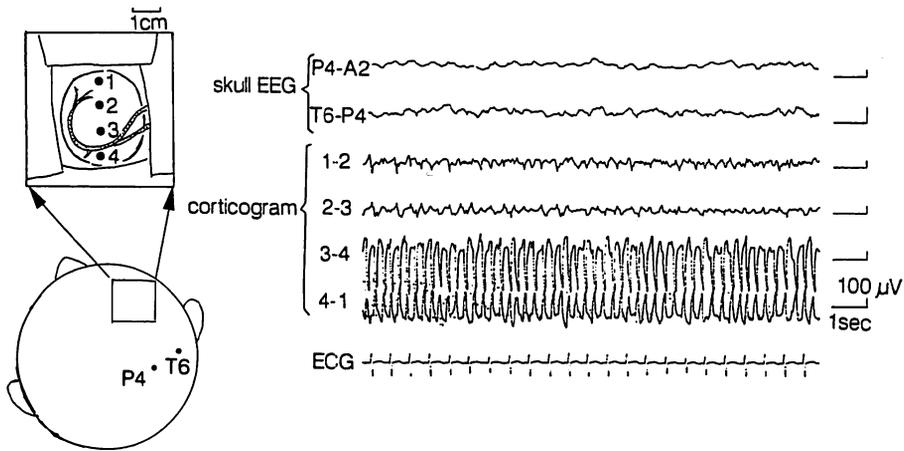


図4 皮質脳波
術中の発作時脳波で、3-4の間に局限した500 µVの高電位律動波を認めた。

〈腫瘍の肉眼的所見〉 2.5cm×3.0cm×3.0cmの内部に小さな腔を有する境界明瞭な腫瘍であった。
 〈病理組織像〉 腫瘍細胞の核周囲の透過性亢進・石灰化像があり、血管内腔に向かって胞体をのばす細長い細胞やロゼット形成も散見された。また、核の大小不同・核分裂像・腎糸球体様の血管内皮の増殖もあった。以上のことから、oligodendrogliomaとependymomaの混在した悪性神経膠腫と診断した。

2. 考 案

Oxbury ら¹⁾によると、11歳以上のけいれん発作重積の原因では、脳腫瘍が20%と多く、特に初発症状がけいれん発作重積であった場合は、30%が脳腫瘍であったと報告している。一方、Aicardi ら²⁾の15歳以下の検討では髄膜炎・脳炎が最も多く、原因を同定できたものの26%を占めていたのに対し、脳腫瘍によるものはなかったと報告している。本症例の場合、術中に行なった腫瘍直上の皮質脳波において発作波を認めたが、術後はけいれん発作はない。このことから、初発症状であるけいれん発作重積の焦点は腫瘍の一部にあったと判断できた。成人同様、幼児でもけいれん発作重積の原因として脳腫瘍の存在を忘れてはいけないと思われた。

本症例は、oligodendroglioma とependymoma の混在した悪性神経膠腫であったが、当初は脳膿瘍との鑑別に苦慮した。その理由として、入院時発熱していたこと、血液検査で炎症所見があったこと、CTで周囲に高吸収域を伴った嚢状陰影として認められたことが挙げられる。診断には、経時的に撮ったMRIが有用であった。画像診断上、脳膿瘍と脳腫瘍の鑑別は難しく、脳膿瘍はMRIのT1強調画像で低信号域として、T2強調画像で高信号域として認められるが³⁾、多くの脳腫瘍も同様の所見を呈するため⁴⁾、一枚の画像で両者を鑑別することは困難なことが多い。しかし脳膿瘍であれば、適切な抗生物質治療により、その陰影の大きさは平均2.4週間(1~4週間)で縮小がみられる⁵⁾と言われている。我々の症例も、抗生物質による治療開始後1か月で変化がなく、さらに2か月後には大きくなっていったということからも、長くても4週間の抗生物質による治療で、陰影の縮小傾向がみられない時は、外科的治療・組織学的診断を行なう必要があると考えられた。

文 献

- 1) Oxbury J. M. and Whitty C. W. M.(1971) The syndrome of isolated epileptic status. J. Neurol. Neurosurg. Psychiat. 34, 182 - 184.
- 2) Aicardi J. and Chevrie J. J.(1970) Convulsive Status Epilepticus in Infants and Children, A Study of 239 Case. Epilepsia. 11, 187 - 197
- 3) Smith RR, Kuharik MA.(1990) Inflammation and infection of the brain. In :Magnetic resonance imaging of Children.(Cohen MD, Edwards MK, et al.), Philadelphia : B. C. Decker, Inc., 221 - 275
- 4) Davis PC.(1990) Tumors of the brain. In : Magnetic resonance imaging of children (Cohen MD, Edwards MK, et al.) Philadelphia : B. C. Decker, Inc., 150 - 220
- 5) Mark L. Rosenblum MD, Julian T. Hoff MD, David Norman MD, et al.(1980) Nonoperative treatment of brain abscess in selected high-risk patients. J. Neurosurg. 52, 217 - 225