

新生児口腔内腫瘍の鑑別診断における MRI の有用性

- 1) 奈良県立医科大学新生児集中治療部
- 2) 奈良県立医科大学小児科学教室
- 3) 奈良県立医科大学放射線医学教室

橋本和子¹⁾, 高橋幸博¹⁾, 田中妥永子²⁾
岡嶋千賀子²⁾, 西久保敏也²⁾, 岩崎聖³⁾, 吉岡章¹⁾²⁾

DIFFERENTIAL DIAGNOSIS OF INTRAORAL TUMOR IN NEONATES USING MRI

KAZUKO HASHIMOTO¹⁾, YUKIHIRO TAKAHASHI¹⁾, TAEKO TANAKA²⁾,
CHIKAKO OKAJIMA²⁾, TOSHIYA NISHIKUBO²⁾, SATORU IWASAKI³⁾ and AKIRA YOSHIOKA¹⁾²⁾

- 1) *Division of Neonatology, Nara Medical University*
- 2) *Department of Pediatrics, Nara Medical University*
- 3) *Department of Radiology, Nara Medical University*

Received March 20, 1995

Abstract: We describe the usefulness of magnetic resonance imaging (MRI) for differential diagnosis of intraoral tumor in neonates. We present two neonates who suffered from dyspnea due to intraoral tumor since birth. In both cases, computed tomography (CT) failed to reveal the communication between the intraoral tumor and intracranial organs. In Case 1, the intraoral tumor communicating with sella turcica through a cranio-pharyngeal canal was identified by MRI and then, a diagnosis of transsphenoidal meningoencephalocele was established. In Case 2, a diagnosis of solitary cyst in the oropharynx was established by MRI. MRI was very useful in the differential diagnosis of intraoral tumor in neonates.

Index Terms

MRI, intraoral tumor, transsphenoidal meningoencephalocele, oropharyngeal cyst, neonate

はじめに

新生児口腔腫瘍には粘液嚢胞のほか奇形腫(上顎体)や脳髄膜瘤等がある。これらは気道閉塞による呼吸困難を来すことがあり、早期に適切な診断と外科的治療を必要とする場合が多い。今回われわれは新生児口腔内腫瘍の2症例(頭蓋底部脳髄膜瘤および中咽頭部粘液嚢胞)を経験し、その鑑別診断、特に頭蓋内との交通性の判別に magnetic resonance imaging (MRI) が有用であったので報告する。

症 例 1

患児: H. T., 日齢0, 女児(1988年4月20日生, ID: 21-8487-7).

主訴: 口腔腫瘍および呼吸困難。

家族歴: 同胞3名中第2子。母親は口蓋裂閉鎖術を受けているが、口腔内腫瘍の既往はなかった。

現病歴: 口腔内腫瘍による出生直後からの呼吸困難を主訴に当院新生児集中治療部(NICU)に搬送入院となり、直ちに気管内挿管による人工呼吸管理を行った。

入院時現症: 口腔内所見では口蓋裂と同部より咽喉頭部に突出する淡紅色の表面平滑な多房性腫瘍を認めた。

入院後経過：日齢1に咽喉頭部CTを行い、硬口蓋欠損部に接する嚢胞状腫瘍を確認し (Fig. 1), 上顎体の診断の下に日齢3, 腫瘍摘出術を施行した。病理組織学的所見では扁平上皮からなる嚢胞で多数の血管腔を有し, 好中球, リンパ球とともに著明に発達した中枢神経細胞を認めた。術後, 呼吸状態は速やかに安定し日齢28に退院した。しかし, 日齢48, 化膿性髄膜炎を発症し, 当院小児科に再入院となった。その後も髄液漏れを引き続く化膿性髄膜炎の寛解と増悪を繰り返し, その都度強力な抗生物質投与を必要とした。なお, 患児の詳細な臨床経過については教室の岡嶋¹⁾らがすでに報告した。

MRI 所見：口腔内腫瘍摘出と化膿性髄膜炎の反復のエピソードより髄液漏れを疑い, 頭蓋内と口腔 (残存腫瘍) 間の交通性の有無を検討した。咽喉頭 MRI (T₁ 強調像) では頭蓋咽喉管を介して残存腫瘍部への脳実質の脱出を確認した (Fig. 2)。また, メトリザミド CT では冠状断面像で造影剤がトルコ鞍から蝶形骨の骨欠損部を通り残存腫瘍まで達し, 水平断面像では頭蓋咽喉管がドーナツ状に造影され, 管内中央部に脳組織の存在が疑われ, 前述の MRI 所見と一致した。以上より頭蓋底部脳髄膜

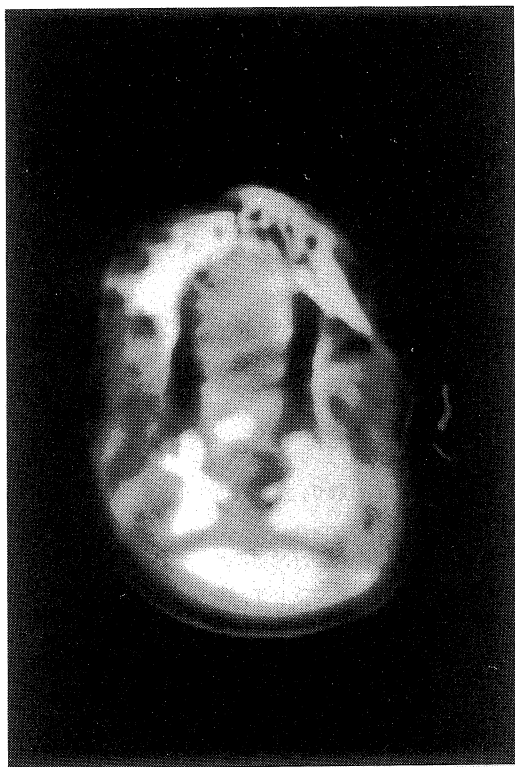


Fig. 1. CT scan of Case 1 shows intraoral cystic tumor contacting with the defect of palate.

瘤と診断した。

術後経過：生後8か月に脳室腹腔短絡術を施行し, 髄液圧減圧による髄膜瘤開口部の機能的閉鎖を計った。その後, バルブ圧の調節のための再手術を必要としたが, 以後髄膜炎の再発はなく経過し, 6歳6か月現在, 精神身体発達は良好である。なお, 2歳6か月時に口蓋裂閉鎖術を施行した。

症 例 2

患児：Y.K., 日齢1, 男児 (1989年7月29日生, ID: 24-5760-1)。

主訴：呼吸困難。

家族歴：第1子で特記事項なし。

現病歴：母親の妊娠および分娩経過に異常なく, 他院にて在胎39週4日, 後頭位正常分娩にて出生。出生体重3,090g, アプガースコア (1分) は9点であった。生後24時間頃より陥没呼吸が出現し, 酸素投与するも改善しないため, 当院NICUに搬送入院となった。

入院時現在：全身状態は比較的良好で, 身長48.8cm,



Fig. 2. T1-weighted sagittal MRI of Case 1 shows a communication between intraoral tumor and sella turcica through a craniopharyngeal canal.

体重 2,900 g, 頭囲 35.0 cm, 胸囲 32.0 cm. 呼吸数は 40 /分前後で, 吸気時に著明な陥没呼吸が認められた. 喉頭鏡にて舌根部から喉頭蓋にかけて直径 2 cm 大の表面平滑な淡紅色の嚢胞状腫瘍を確認した. 四肢に軽度のチアノーゼを認めたが, その他心肺, 腹部に異常所見を認めず, 外表奇形はなかった.

入院時検査所見: 白血球数 18,000/ μ l, CRP 0.4 mg /dl と軽度の炎症所見を認めたが, その他の血液生化学検査に異常はなかった.

50%酸素投与下での混合血血液ガス所見は pH 7.338, PO₂ 63.3 mmHg, PCO₂ 39.8 mmHg, BE -4.2 mmol /l であった.

入院後経過: 入院後も体位変換に伴い, 軽度の陥没呼吸は認められたが, 酸素投与を必要とせず, 血液ガス所見も正常範囲を維持した. 日齢 5 に咽喉頭部 CT を行い, 中咽頭部に嚢胞状腫瘍を確認したが, 頭蓋内との交通性の有無は明らかではなかった (Fig. 3). 日齢 6 に咽喉頭部 MRI を行い, 他臓器との交通性のない中咽頭部の粘液嚢胞と診断した (Fig. 4). 日齢 11 に穿刺排液および嚢胞壁部分切除術を行い, 呼吸状態は改善, 安定した. 病理組織学所見は扁平上皮細胞に被覆された嚢胞で, 内容

物は若干の白血球細胞を含む淡白色の漿液であった. 日齢 32 に咽喉頭部 MRI を再度施行し, 残存腫瘍に再貯留および肉芽組織の増生のないことを確認し, 日齢 33 に退院した.

考 察

新生児口腔内腫瘍は生後早期より呼吸困難を呈することが多く, 救命処置として早急に腫瘍摘出術等の外科的処置を必要とすることがある. 口腔内腫瘍には粘液嚢胞をはじめ奇形腫 (上顎体) や脳髄膜瘤等があるが, 疾患によりその治療法が大きく異なる. そのため, 術前に適切な鑑別診断を下さなければならない. 特に, 頭蓋内との交通性を有する脳髄膜瘤の取り扱いには患児の生命予後のみならず機能予後を大きく左右するため, より確実な鑑別診断が望まれる.

頭蓋底部脳髄膜瘤の根治術の原則は, intracranial approach により硬膜および骨欠損部を厳重に補填処置することで頭蓋内との交通性を断つことにある. また, 下垂体や視床下部等の重要組織が腫瘍内容のこともあるため切除は行わず, 可能な限り温存, 還納すべきであ



Fig. 3. CT scan of Case 2 shows cystic tumor in oropharynx.

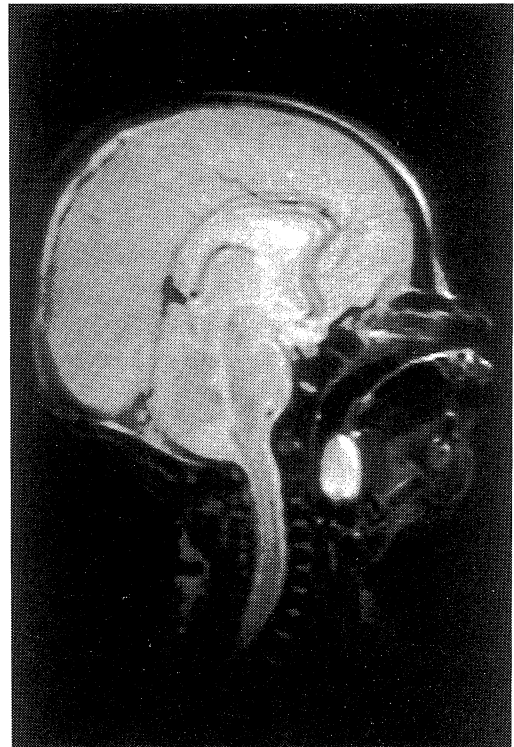


Fig. 4. T1-weighted sagittal MRI of Case 2 shows oropharyngeal cyst, which is isolated from intracranial organs.

るとされている²⁾。しかしながら、検索し得た頭蓋底部脳髄膜瘤 52 例の報告のうち、粘液嚢腫やポリープ等の診断の下に試験穿刺あるいは摘出術が行われた症例は 24 例 (46%) にもものぼり、多くの症例で術後に髄液漏や髄膜炎といった重篤な合併症を引き起こしている¹⁾⁻⁶⁾。自験例の症例 1 においても出生直後からの著明な呼吸困難に対する救命処置とはいえ、上顎体の診断の下に腫瘍摘出術を施行し、その後、髄液漏から化膿性髄膜炎の反復をもたらしたことは、術前の検索が不十分であったと反省させられる。

頭蓋底部脳髄膜瘤の診断には頭部単純レントゲン写真や CT、メトリザミド CT、MRI 等による骨欠損部の確認ならびに腫瘍と頭蓋内との交通性の有無の検討が不可欠であるとされる。しかし、症例 1 および 2 のいずれにおいても単純 CT では口腔内腫瘍との交通性の有無は判別できず、MRI において、はじめてその有無を明確にし得た。さらに症例 1 では摘出標本に中枢神経細胞を認めたが、後に検索した MRI 像では頭蓋内と腫瘍との交通性はもとより脳脱像も描出でき、脳髄膜瘤と診断可能であった。以上より、新生児頭蓋底部脳髄膜瘤の鑑別診断には骨欠損部のみならず脳組織の脱出程度をも明確にし得る検出度からみて、CT よりむしろ MRI が有用であり、第一選択とすべき検査であると考えられた。

また、近年、胎児超音波検査による上顎体の出生前診断の報告が散見されている⁷⁾⁻⁹⁾。しかし、脳髄膜瘤の超音波所見は上顎体に類似しており⁹⁾、また、超音波検査のみでは頭蓋内との交通性の有無の判断はできず、診断は困難である。一方、胎児の脳髄膜腫瘍症例において MRI を用いることによって脳実質の脱出程度をも確実に診断し得た症例の報告¹⁰⁾もあり MRI は有用性の高い検査である。この胎児診断により出生後の治療方針を決定したうえででの分娩が可能となり、患児の intact survival にとって極めて重要であると考えられる。

結 語

新生児口腔内腫瘍の 2 症例 (頭蓋底部脳髄膜瘤および中咽頭部粘液嚢胞) を通して鑑別診断における MRI の有用性について述べた。新生児口腔内腫瘍においては呼吸困難を呈し救命処置として早期の摘出術を必要とする症例もある。かかる症例では鑑別診断として頭蓋底部脳髄膜瘤の存在を念頭におき、短時間のうちに腫瘍と頭蓋内との交通性の有無や腫瘍内への脳組織の脱出に関して確実な診断を下すことが患児の intact survival にとって極めて重要である。これには MRI が第一選択とすべき有用な検査であると考えられる。

なお、本論文の要旨は第 35 回未熟児新生児学会 (1990 年 11 月, 神戸) において発表した。

文 献

- 1) 岡嶋千賀子, 田中一郎, 吉岡 章, 福井 弘, 西久保敏也, 瓜生マキ, 南淵 芳, 高瀬俊夫, 一条元彦, 宮原 裕, 石田泰史, 平松謙一郎, 榊 寿右: 新生児期に呼吸困難を呈した transsphenoidal meningoencephalocele の 1 例. 新生児誌. 27: 663, 1991.
- 2) 白瀧邦雄, 坂本敬三, 大原義雄: Transsphenoidal Encephalocele の診断と治療について. 脳と神経 28: 281, 1976.
- 3) Pollock, J. A., Newton, T. H. and Hoyt, W. F.: Transsphenoidal and transethmoidal encephalocele. A review of clinical and roentgen features in 8 cases. Radiology 90: 442, 1968.
- 4) 山谷真巳, 今村博明, 岡田敏夫, 遠藤俊朗, 竹谷徳雄: Transsphenoidal meningoencephalocele に合併した反復性髄膜炎の 1 男児例. 小診. 11: 2349, 1987.
- 5) 村木幸太郎, 西 美和, 臼井朋包, 迫田勝明, 玄守鉄, 魚住 徹: Transsphenoidal type の頭蓋底髄膜瘤による下垂体性小人症の 1 例. 小臨. 35: 1203, 1982.
- 6) 山田一恵, 稲垣義彰, 月館幸一, 森 理, 小川正道, 小林達也, 金井 朗: 下垂体性小人症と尿管症を伴った蝶形骨部脳髄膜瘤 (Transsphenoidal meningoencephalocele) の 1 男子例. 小臨. 38: 323, 1985.
- 7) 大石昌也, 野渡正彦, 小口弘毅, 八代公夫, 巽 英樹: 出生前診断された未熟型鼻咽頭奇形腫の 1 例. 新生児誌. 27: 580, 1991.
- 8) 大浜洋一, 板倉敬乃, 金子広司, 中村利彦, 馬嶋久美子, 高崎二郎, 小山典久, 田中太平, 江口秀史, 川瀬 淳, 神谷賢二, 小川雄之亮: 上顎体 (Epignathus) の 1 例. 新生児誌. 27: 345, 1991.
- 9) Miskin, M., Rudd, N. L., Dische, M. R. and Pirani, B. B.: Prenatal ultrasonic diagnosis of occipital encephalocele. Am. J. Obstet. Gynecol. 130: 585, 1978.
- 10) 濱田洋実, 小松あかね, 宗田 聡, 是澤光彦, 久保武士: 嚢胞性二分頭蓋 cranium bifidum cysticum の出生前診断—MRI の有用性について. 新生児誌. 25: 691, 1989.