

第184回例会一般講演 (査読論文)

外傷歴のない15歳女兒に生じた
特発性脊髄硬膜外血腫の一例伊勢赤十字病院 小児科/新生児科¹⁾、脳神経外科²⁾山口 祐¹⁾、一見 良司¹⁾、大下 夏実¹⁾
坂崎 友則¹⁾、倉井 峰弘¹⁾、鎌田 尚樹¹⁾
伊藤美津江¹⁾、東川 正宗¹⁾、青木 一晃²⁾

要旨

症例は生来健康な15歳女兒。修学旅行先で夜トランプをしている際に突然の背部痛とそれに続いて両下肢の脱力が出現し当院へ救急搬送された。診察時には胸部以下の感覚鈍麻と両下肢のほぼ完全麻痺、膀胱直腸障害を認め、CT/MRIにてT2-4レベルに硬膜外血腫を認めた。進行性麻痺を呈したため緊急手術（血腫除去術およびT3椎弓形成術）を施行した。術後より徐々に神経症状は改善を認め術翌日からリハビリテーションを開始した。その後麻痺は歩行器で歩行できるまで改善し、膀胱直腸障害も夜間の尿失禁のみとなり、術後15日目にリハビリ専門病院へ転院となった。

本症例では外傷、出血素因等の基礎疾患や薬剤使用なく、術中所見および術後造影CTでも明らかな血管奇形等の原因を認めず、特発性脊髄硬膜外血腫と診断した。また、発症の1週間前に新型コロナワクチンの2回目接種をされているが因果関係は不明であった。小児期発症の脊髄硬膜外血腫はまれであり、早期診断と早期治療が重要である。

Key words: spontaneous spinal epidural hematoma (SSEH) 特発性脊髄硬膜外血腫、pediatric

はじめに

脊髄硬膜外血腫 (spinal epidural hematoma:

SEH) は1869年Jacksonにより初めて報告された¹⁾。特発性脊髄硬膜外血腫とは主な外傷などの原因がないにもかかわらず突然の頸部痛や背部痛とともに脊髄症状を呈する稀な疾患である²⁻³⁾。発生頻度は1年間で10万人に0.1人とされる²⁾。中高年に多くみられ、小児例は少ない⁴⁾。進行性麻痺を呈する場合は手術療法が考慮されるため迅速な診断が大切である^{3,5)}。

今回、我々は外傷歴のない15歳女兒に生じた特発性脊髄硬膜外血腫の一例を経験したので報告する。

症例

症例：15歳女兒

主訴：背部痛

既往歴、家族歴：特記すべきことなし

出生歴、発達歴：特記すべきことなし

内服歴：なし

現病歴：修学旅行先のホテルで深夜0時頃に正座の姿勢でトランプをしている際に突然の背部痛が出現し、徐々に増悪した。午前3時頃に両下肢の脱力が出現したため当院へ救急搬送となった。当院到着時刻は午前4時1分、問診では外傷や感冒の既往はなかったが1週間前に新型コロナワクチンの2回目を接種されていた。

現症：Glasgow Coma Scale:E4V5M6、身長149 cm、体重40kg、体温38.4度、上肢血圧112/39 mmHg、脈拍数75回/分、呼吸数20回/分、SpO₂ 98% (room air)、身体所見では胸部 (Th 4 レベル) 以下で温痛覚及び深部感覚で鈍麻を認めた。両上肢筋力は正常、両下肢筋力は MMT：0/5、両上肢の深部腱反射は正常、膝蓋腱反射・アキレス腱反射は両側とも陰性であった。

検査所見：血液検査では血算、血液生化学所見に異常はなく、出血時間、プロトロンビン時間、活性化部分トロンボプラスチン時間も正常範囲内であった (表1)。心電図検査では心拍数65回/分、洞調律で特記所見は認めなかった。

画像所見：CT検査ではTh 3 レベルの脊柱管内背側に高吸収域を認め (図1)、また緊満した膀胱所見を認めた (図2)。SEHを疑いMRI検査を施行したところTh 2 からTh 4 レベルに脊髄を背側から圧迫する占拠性病変を認め、T1 強調像で脊髄と比較して等信号、T2 強調像で内部不均一で境界明瞭な高信号を示した (図3)。

以上から明らかな原因は不明であったがSEHによる脊髄障害と診断した。また、CTで緊満

した膀胱にも関わらず尿意を認めていなかったことから脊髄症状としての膀胱直腸障害が考えられた。

経過：麻痺に改善傾向はなく、緊急手術を施行した。発症から診断までは7時間30分、手術までは11時間の経過であった。血腫除去術及びT3 椎弓形成術を行い、脊柱管内を占拠する血腫を摘出した。術中、硬膜外の血管奇形は認めず、硬膜外静脈叢からの出血と考えられた。術後1日目にはリハビリテーションを



図1 CT検査

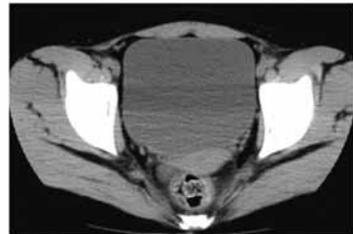


図2 CT検査



図3 MRI検査

表1 来院時血液検査

WBC	7500	/μl	CK	176	IU/l
Neu	82.2		Glu	114	mg/dl
Eo	0.4		BUN	14	mg/dl
mon	2.1		Cre	0.61	mg/dl
lym	15.0		Na	139	mEq/l
Hb	13.6	g/dl	K	4.2	mEq/l
Plt	268	×10 ³ /μl	Cl	107	mEq/l
TP	7.7	g/dl	CRP	<0.10	mg/dl
Alb	4.5	g/dl	PT	11	秒
T-Bil	0.4	mg/dl	APTT	34	秒
AST	21	IU/l			
ALT	12	IU/l			
LDH	173	IU/l			
ALP	344	IU/l			
γGTP	12	IU/l			

開始した。感覚鈍麻は改善傾向にあり、右足趾の自動運動が可能となった。その後も麻痺は改善傾向となり、術後15日目には地元の病院へリハビリ継続目的で転院となった。感覚障害は寛解し、両下肢筋力も歩行器での歩行が可能となり、膀胱直腸障害は夜間の尿失禁のみの残存であった。術後5週間には自立歩行可能となり自宅に退院できた。

本症例は先行する外傷歴や出血素因、薬剤使用歴はなく、入院中を通して高血圧はなかった。術中所見でも明らかな血管奇形はないため特発性脊髄硬膜外血腫と診断した。術後はリハビリテーション等を通して完全麻痺から独歩可能まで改善した。

考察

SEHは1869年Jacksonにより初めて報告された¹⁾。主な症状は硬膜外の血腫形成により突然の頸部痛や背部痛にはじまり四肢麻痺や感覚障害、膀胱直腸障害を呈し、脊髄ショックに至ることもある稀な疾患である²⁻³⁾。原因としては、外傷、血液凝固異常（抗凝固療法、血友病など）、血管奇形、高血圧などがあるが、明確な原因が同定できない特発性も多い^{3-4, 6)}。鑑別疾患としては外傷、髄膜炎、硬膜外腫瘍または膿瘍、脊髄梗塞、椎間板疾患、急性横断性脊髄炎、Guillain-Barre症候群などが挙げられる。本症例では臨床症状や血液生化学所見から感染徴候や出血傾向、凝固異常は認められず、MRI画像からも腫瘍や膿瘍、脊髄梗塞、椎間板疾患、急性横断性脊髄炎は否定的であった。

特発性脊髄硬膜外血腫の発生頻度は1年間で10万人に0.1人とされて²⁾、男女比は1.4:1と報告されている³⁾。15~20歳と65~70歳の二峰性を呈するが、中高年が占める割合が多く、小児例は少ない⁴⁾。特に乳幼児例では歩行障害など両下肢筋力などの訴えのほか、不機嫌や啼泣など非典型的な症状もあり診断が遅れやすく、

Guillain-Barre症候群と診断され免疫グロブリン治療が行われている報告例が国内外であがっている⁷⁻⁹⁾。

診断にはMRIが有用である。CTで病変の検出は可能であるが感度に優れておらず、血腫の性状や浮腫の評価を含めてMRIによる画像診断が確実である¹⁰⁾。出血直後のヘモグロビンは超急性期（24時間以内）にオキシヘモグロビンとなり、急性期には酸素を失いデオキシヘモグロビンへと変化するため、血腫はT2強調画像では高信号、発症初期のT1強調画像では等信号で、次第に高信号になるとされている^{5, 10-11)}。本症例は超急性期での画像変化といえる。

主な出血のメカニズムは脊髄硬膜外腔に存在する硬膜外静脈叢の破綻から起こる^{6, 11)}。脊髄硬膜外の静脈叢は弁を有していないため圧変化に対する制御機能が低く運動や咳込み、軽微な外傷などで胸腔腹腔内圧が上昇するだけでも損傷され出血されやすいとされる。加えて腹側より背側にきたしやすい理由は、腹側の硬膜外静脈は部分的に後縦靭帯に保護されている領域が多く、また背側は腹側よりも静脈叢が発達しているという要因がある^{6, 10)}。本症例でも背側であった。

Audrey¹²⁾らは、文献から150例の分析を行い、小児の特発性脊髄硬膜外血腫の原因としては原因不明38%、血友病などの血液凝固疾患28%、スポーツや首の捻挫などの軽微な外傷20%、血管奇形14%としている。発症年齢の中央値は7歳、受診から治療までは中央値5.6日、診断から治療までは中央値1.9日要している。発生部位は下位頸椎から上位胸椎に好発している。頸胸椎に発症しやすい原因としては脊椎の動きによる静脈圧の上昇との関係が示唆されている⁵⁾。このため症状出現は頸部痛からが多い。神経学的予後は65.5%が完全に改善を有し、33%は部分的な改善、2%は全く改善を示さなかった。

治療は進行性麻痺を呈する場合は原則手術が

推奨され、脊髄の圧迫が解除されることにより早期であれば神経症状は軽減する^{3,10)}。特に12~48時間以内での手術が神経機能の改善率が高い¹¹⁾。高齢や神経機能障害が重度、血腫の上下長が4椎体長以上であることは予後不良因子である可能性がある^{5,11,13-14)}。術後の主な合併症としては成長に伴う脊柱変形があり、特に年齢が低いほど脊柱変形しやすいといわれている³⁾。軽症例や麻痺の自然回復徴候が見込まれる場合は手術を要さない場合もある^{12,15-18)}。

本症例では進行性の神経症状を呈し、発症から手術までおよそ11時間の経過で、早期に手術を行うことで予後が良好になると考えられた。実際に、観察期間中に麻痺は自力歩行可能な程度まで改善した。脊柱変形や神経学的予後の経過については今後長期的な観察が必要である。

尚、本症例では1週間前に新型コロナワクチン(コミナティ)の2回目を接種されていた。海外では高齢者における新型コロナウイルス感染症罹患後に特発性脊髄硬膜外血腫を発症した報告例はあった¹⁹⁻²¹⁾。発症メカニズムは仮説ではあるが新型コロナウイルス感染により胸腔内圧の増加によるものや加齢による靭帯や骨の変性が血管障害を起こすものが考えられたが詳細は不明である²¹⁾。ワクチン接種後の発症例は検索した限り見つからず、因果関係は不明である。

結語

15歳女兒に発生した特発性脊髄硬膜外血腫の1例を経験した。本症の診断にはMRIが有用であった。発症後およそ11時間後に手術を行い、麻痺はほぼ完全に改善が得られた。突然発症の頸部痛・背部痛から脊髄症状を呈した場合、脊髄硬膜外血腫の可能性を考慮すべきである。早期診断のためには本疾患の認知が重要で、進行性麻痺がある場合には発症早期の手術により良好な神経機能の改善が期待できる。今後の神経学的予後や脊柱変形の進行などの経過について

は長期の観察が必要である。

本論文の要旨は第184回三重県小児科医会例会(2022年1月23日、津市)で発表した。発表内容に関連し、発表者らに開示すべきCOI関係にある企業などはありません。

(2022年2月4日受付、2022年2月21日受理)

参考文献

- 1) Jackson R: Case of spinal apoplexy. *Lancet* 1869;2:5-6.
- 2) Holtas S, Heiling M, Lonntoft. Spontaneous spinal epidural hematoma: finding at MR imaging and clinical correlation. *Radiology* 1996;199:409-413.
- 3) Groen RJ, van Alphen HA. Operative treatment of spontaneous spinal epidural hematomas: A study of the factors determining postoperative outcome. *Neurosurgery* 1996; 39:494-508.
- 4) Kreppel D, Antoniadis G, Seeling W. Spinal hematoma: a literature survey with meta-analysis of 613 patients. *Neurosurg Rev* 2003; 26: 1-49.
- 5) Jessica Figueroa, John G. DeVine. Spontaneous spinal epidural hematoma: literature review. *J Spine Surg* 2017; 3: 58-63.
- 6) Nayak N et al. Delayed recovery of paraplegia following surgical evacuation of spontaneous cervicothoracic epidural hematoma. *Childs Nerv Syst* 2011;27:2031-2032.
- 7) 藤田有紀, 和田簡一郎, 田中利弘, 他. 幼児に発症した脊髄硬膜外血腫の1例. *東日本整災会誌* 2015; 27: 431-435.
- 8) Aya Kondo, Hiroshi Yamaguchi, Yusuke Ishida, et al. Spontaneous spinal epidural

- hematoma mimicking Guillain-Barre Syndrome. *Brain Dev* 2019; 41: 392–395.
- 9) Ertugrul Cakir, Gökalp Karaarslan, Haydar Usul et al. Clinical course of spontaneous spinal epidural haematoma mimicking Guillain-Barré syndrome in a child: a case report and literature review. *Dev Med Child Neurol* 2004;46:838–42.
- 10) Adil Naeem, Julian Hanson, John Freebody, et al. Spontaneous cervical epidural haematoma-diagnosis as unexpected finding by CT: case series. *Quant Imaging Med Surg* 2019; 9: 19 86–1991.
- 11) Smita Ramachandran, Varsha Mishra, Rani Gera et al. Rare Presentations of Spontaneous Spinal Epidural Hematomas in Children. *J Pediatr Neurosci* 2020; 15: 171–174.
- 12) Audrey Carlhan-Ledermann et al. Spinal epidural hematoma without significant trauma in children: two case reports and review of the literature. *BMC Pediatrics* 2020; 20: 77.
- 13) Cheng-Chih Liao, Po-Chuan Hsieh, Tzu-Kang Lin, et al. Surgical treatment of spontaneous spinal epidural hematoma: a 5-year experience. *J Neurosurg Spine* 2009; 11: 480–6.
- 14) Zhan Liu, Qingfang Jiao, Jianguo Xu. Spontaneous spinal epidural hematoma: analysis of 23 cases. *Surg Neurol* 2008; 69: 253–60.
- 15) Kohji Azumagawa, Shinji Yamamoto, Keiko Tanaka, et al. Non-operative treated spontaneous spinal epidural hematoma in a 12-year-old boy. *Pediatr Emerg Care* 2012; 28: 167–9.
- 16) Shubao Zhang, Fengyang Geng, Jiyue Wang. Rapid Recovery of Spontaneous Spinal Epidural Hematoma without Surgical Treatment: Case Report and Literature Review. *World Neurosurg* 2018; 115: 216–219.
- 17) Tackeun Kim, Chang-Hyun Lee, Seung-Jae Hyun. Clinical Outcomes of Spontaneous Spinal Epidural Hematoma: A Comparative Study between Conservative and Surgical Treatment. *J Korean Neurosurg Soc* 2012; 52: 523–7.
- 18) B Zhang, J Chen, N Zou. Spontaneous resolution and complete recovery of spontaneous cervical epidural hematoma: Report of two cases and literature review. *Neurochirurgie* 2019; 65: 27–31.
- 19) Özkaya Zübeyde, Kurtuluş Adem, Dinç S amet. A case of spontaneous thoracolumbar epidural hematoma in Covid-19 pneumonia. *Int J Surg Case Rep* 2021; 90: 106719.
- 20) Shawn Wen-Yang Lim, Evelyn Wong. Spontaneous Epidural Hematoma of the Cervical Spine in an Elderly Woman with Recent COVID-19 Infection: A Case Report 2020; 21: e926784-1-e926784-4.
- 21) Scalia G., Umana G. E., Marrone S., et al., et al. Spontaneous anterior cervicothoracic spinal epidural hematoma extending to clivus in SARS-CoV-2 infection. *Surg. Neurol. Int* 2021;12:1–4.