

Frontal Horn Cysts の 1 例

三宅 進*, 宮村能子

香川県立中央病院 小児科

A case of frontal horn cysts

Susumu Miyake*, Takako Miyamura

Department of Pediatrics, Kagawa Prefectural Central Hospital, Kagawa 760-8557, Japan

We herein report a case of bilateral frontal horn cysts. The infant was delivered with a low birth weight (1,710g) at 31 weeks, 0 days by emergency Cesarean section. She was severely asphyxiated and exhibited respiratory distress syndrome. Surfactant was administered, and mechanical ventilation was required until 21 days of age. Brain computed tomography (CT) at 45 days of age revealed bilateral cysts adjacent to the frontal horns of the lateral ventricles. Her growth and development were normal. At 1 and a half-years of age, she underwent brain CT again and the above-mentioned cystic abnormality had disappeared. No dilatation or irregularity of the lateral ventricles was found. Normal development and transient abnormal cystic findings in brain CT suggested a diagnosis of frontal horn cysts. Frontal horn cysts should be considered as the causes of cystic lesions of the brain.

キーワード: frontal horn cyst, 頭部CT (Brain CT), 新生児 (neonate)

諸 言

Frontal horn cyst (FHC) は Thun-Hohenstein ら¹⁾, Pal ら²⁾, Chang ら³⁾により報告された新生児期にみられる側脳室前角部の一過性の嚢胞性病変で, 脳室周囲白質軟化症などとの鑑別が重要である. 今回我々は FHC の 1 例を経験した. 貴重な症例と思われたので報告する.

症 例

在胎31週0日の女児で自然破水あり, 母体に発熱がみられ, CRP 2.9mg/dLと上昇したため緊急帝王切開にて出生した. 羊水混濁はなかった. アプガールスコアは1分2点, 5分4点と仮死を認め啼泣弱く, 出生直後挿管され未熟児室に入室した. 生下時体重1,710g, 身長44.5cm, 頭囲29cm, 胸囲27cmの在胎週数相当体重児 (appropriate for gestation age) であった. 身体奇形なし, シルバーマンスコア10点で肺野の聴診所見で空気の入りは不良で全肺野にラ音を聴取した. モロー反射は両側に正常に認められた. 臍帯血 CRP 0 mg/dL, APR スコア 0 点, Na 136.9mEq/L, K 5.9 mEq/L, Cl 107.4mEq/L, Ca 9.2mg/dL, TP 4.6 g/dL, 血糖73mg/dL, IgM<10mg/dL, 胸部X線にて呼吸窮迫症候群

の Bomsel 分類Ⅲ度. 縦隔気腫, 気胸を合併していた. ただちに肺サーファクタント投与し人工呼吸器管理, 輸液, 抗生剤投与を行った. 経皮的ガス分圧測定では PcO_2 80~90mmHg, $PcCO_2$ 45~50mmHgを維持していた. 経過中 high frequency oscillation の使用, 肺サーファクタントの再投与を行いながら, 呼吸管理した. 高ビリルビン血症に光線療法を行い, 低カルシウム血症にグルコン酸カルシウム水和物, 未熟児貧血にエポエチンアルファを投与しながら観察した. 14日に酸素中止, 21日抜管できた.

生後45日 (在胎37週3日に相当) 2,434gになり低酸素性脳障害の可能性が危惧され頭部CT検査を行った (図1A) ところ両側脳室前角に接して前頭葉白質内に, ほぼ円形で直径約1cmの低吸収域が認められた. 同時期に行った聴性脳幹反応は正常で, 生後50日の脳波に特記すべき異常はなく, 眼底にも異常なかった.

生後73日 (在胎41週3日相当) 体重3,790g, 身長52.5cm, 頭囲35cmで臨床的異常は認めず退院した. 以後乳児健診で経過観察した. 発達は生後4ヵ月3週 (修正月齢2ヵ月2週) にはあやすと笑い, 頸定あり, 寝返り可能であった. 生後7ヵ月 (修正月齢5ヵ月) には両手で支えて座り, 玩具を持って遊び, 人見知りした. 生後9ヵ月 (修正月齢7ヵ月) には喃語があった. 擦り這いで這い, 支えると立った. 生後1歳 (修正月齢10ヵ月) 体重9,840g, 身長76.3cmと発育は順調で, 伝い歩き可能で, 1歳6ヵ月で単語を数語話すことができ, 歩行可能で, 指先で物をつまめ, 発

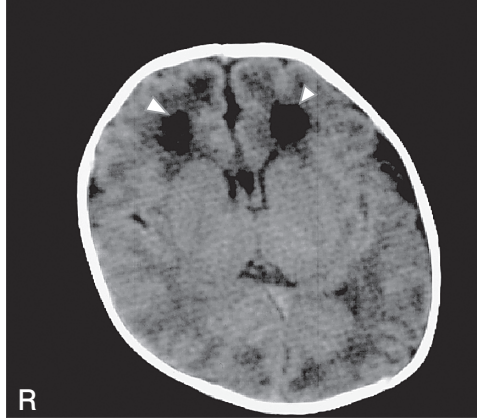
平成24年5月1日受理

*〒760-8557 香川県高松市番町5-4-16

電話: 087-835-2222 FAX: 087-837-6210

E-mail: miyake.susumu@aquaplala.or.jp

A) 生後44日目



B) 1歳6ヵ月



図1 頭部CT

A：両側前頭部（矢頭）に嚢胞を認める．B：嚢胞は消失して，脳実質にも脳室にも異常を認めない．

達の遅れはなかった．さらに2歳健診でも成長発達に異常なく腱反射等にも異常はみられなかった．

1歳6ヵ月頭部打撲のため他院にて頭部CT検査した（図1B）ところ，前回みられた嚢胞性低吸収域は消失していた．また脳室拡大や，脳室周囲の異常はみられなかった．

考 察

本症例は低出生体重児で低酸素性脳障害の可能性が危惧され，症状の落ち着いた生後45日目に行われた頭部CT検査で，異常低吸収域が両側前頭部に認められたが，発達に異常なかった．1歳6ヵ月に頭部CT再検査されたところ，この異常は消失していた．この低吸収域の診断とその発生機序が問題である．

低出生体重児や異常新生児には生後早期より頭部超音波検査がルーチンに行われるようになり種々の嚢胞性異常が検出されている．よくみられる異常所見は脳室周囲白質軟化症（periventricular leukomalacia；PVL），頭蓋内出血あるいは脳梗塞後の嚢胞，subependymal pseudocyst（SEPC），FHCなどである．

PVLは早産児でみられやすい低酸素性虚血脳症の一型で，脳室周囲白質は脳室側から皮質側へと向かう脈絡叢動脈と前・中・後大脳動脈から脳室側へ向う動脈の境界領域のため，低酸素状態に陥った場合この領域に虚血状態が発生しやすい．好発部位は側脳室前角周囲，半卵円中心，三角部周囲の深部白質である．臨床的には乳幼児期から下肢に強い痙性麻痺が発生する．超音波検査では初期には脳室周囲の高エコー域として観察され，生後2週以後嚢胞性変

化が見られる．

SEPCは多くは満期産児で尾状核頭部の側脳室内側面あるいは視床枕・線条体境界部にみられる．これも超音波検査で早期に発見されるが，側脳室内にあたかも隔壁でできられたように，数珠状に連なる多数の嚢胞像を認めるもので，冠状断で両側脳室の最外側点を結んだ線より下方に嚢胞がある．PVLの病変はこの線より上にあり鑑別に有用である．

本例の所見は側脳室前角の先端にみられる円形の低吸収域で嚢胞状に見えた．そして脳室周囲には他の異常を認めないので前記2者とは異なった．さらにPVLとしては臨床的に脳性麻痺を示す運動障害はなかった．偶然にこの部位に出血，梗塞の生じた事も考えられるが，周囲脳組織の脱落や圧迫所見がなかった．

FHCは一般に楕円形で平滑な薄い膜で囲まれた嚢胞であり，大きさは3～20mmで側脳室前角先端に接する．Thun-Hohensteinら¹⁾は3例報告の中でgerminal matrixの出血やPVLの嚢胞とは一過性の出現，側脳室前角に接して出現する点が異なると指摘している．Changら²⁾は18例の成熟児例を報告している．7例は両側，11例は片側（7例は左，4例は右）．女対男の性比は2：1であった．経過をみると6例は1ヵ月で，もう6例は2～11ヵ月で消失している．4例はその後の超音波検査ができていないが正常発達であった．これらの症例を通じてFHCは正常の生理的変異あるいは良性的病理的所見と考えられ，数ヵ月以内に自然消失すると期待でき，典型的な嚢胞では超音波検査を1，2，6ヵ月と繰り返し，消失するのを確認すればよいと報告した．

Palらは²⁾1,500 g未満または在胎33週未満でFHCの発生を11例認めた。嚢胞は生後1日より検出され、次第に大きくなった後、平均生後2ヵ月までに退縮すると報告した。神経発達の子後は11例中10例が正常で、1例の剖検で嚢胞は神経芽細胞と上衣細胞で囲まれていて出血の所見はなかったという。

本症例の嚢胞は自然消滅し神経学的異常を伴わなかったためFHCと考えられる。FHCはまれな状態で未熟児、成熟児とも0.48～0.91%で同じ程度の発生頻度と報告されており^{2,3)}、この頻度に差がない点は周産期の病的異常によって生じたのではないと考えられている。

発生機序に関しては出産前の脳実質内出血、梗塞、虚血、感染、PVL、脳室周囲のgerminal matrixの変性といった事が考えられたが、Palら²⁾は上衣層の分泌活動に伴って嚢胞は大きくなり、上衣細胞の消失やその分泌能力の消滅によって嚢胞がしぼんでしまうと考えた。

Szeら⁴⁾は側脳室前角に接する白質部分の特殊性について生後9ヵ月から82歳までの脳病変を持たない56例のMRI所見を検討し、全例に前角の前方あるいは側方の白質にT2強調にて高信号の点状域を認めた。大きさは点状から1 cmで形は三角形、底辺は前角先端にあり、頂点は前方白質、内側は脳梁膝に区切られ、横は尾状核頭に終わる。組織学的には①髄鞘が少なく、②上衣細胞配列の破壊とグリオーシスで特徴づけられる所見として知られるependymitis granularisがあった。このependymitis granularisは胎齢20週の胎児にはみられず、上衣下のgerminal matrixが消失する時に一致してこれが出現している。また③この部分に水分含量が多いという特徴があるという。これらを考え併せると、細胞間質液は側脳室前角の白質部分を漏斗のよう

にして前角に流入し、上衣細胞は間質液を脳室にくみ出す働きをしていると推論している。

以上の報告から考えると、FHCの成因は、上衣層の機能が破綻して間質液の流れが阻害されるか、あるいは細胞間質液が過量産生されて上衣細胞の処理能力を超え、水分貯留が生じて嚢胞を形成することによるのかもしれない。そして、成長とともに貯留した水分が吸収あるいは排出されて嚢胞が消失するのではないかと考えられる。

本邦でも中村ら⁵⁾が前角近傍の嚢胞構造を認めた新生児17例を報告している。新生児の嚢胞様所見にはまれながら、このようなFHCのあることに留意して頭部超音波検査、CT、MRIの判読を行う必要があると思われた。

文 献

- 1) Thun-Hohenstein L, Forster I, Künzle C, Martin E, Boltshauser E: Transient bifrontal solitary periventricular cysts in term neonates. *Neuroradiol* (1994) 36, 241-244.
- 2) Pal BR, Preston PR, Morgan ME, Rushton DI, Durbin GM: Frontal horn thin walled cysts in preterm neonates are benign. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed* (2001)85, F187-193.
- 3) Chang CL, Chiu NC, Ho CS, Li ST: Frontal horn cysts in normal neonates. *Brain Dev* (2006) 28, 426-430.
- 4) Sze G, De Armond SJ, Brant-Zawadzki M, Davis RL, Norman D, Newton TH: Foci of MRI signal (pseudo lesions) anterior to the frontal horns: histologic correlations of a normal finding. *Am J Roenogenol* (1986) 147, 331-337.
- 5) 中村則子, 宮崎知保子, 長谷川悠, 小野寺麻希, 杉浦 充, 久保公三, 中島建夫, 服部 司, 寺江 聡: 新生児期に認められる前角近傍の嚢胞構造について — MRIを中心とする検討 —. *日本医放会誌* (2005) 65, 368-372.