

斜台部に発生した異所性下垂体腺腫の1例

福井崇人、伊東民雄、安斉公雄、中村博彦
中村記念病院 脳神経外科、財団法人北海道脳神経疾患研究所

Ectopic Pituitary Adenoma Occurring in the Clivus

Takahito FUKUI, M.D., Tamio ITO, M.D., Kimio ANZAI, M.D., and Hirohiko NAKAMURA, M.D.

Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital, Hokkaido Brain Research Foundation, Sapporo, Japan

Abstract:

Ectopic pituitary adenomas are rare and have been described most frequently occurring in the suprasellar region and sphenoid sinus. We present a very rare case of ectopic pituitary adenoma occurring in the clivus. A 54-year-old woman was referred to our hospital complaining of headache. She had no endocrinological abnormalities. Magnetic resonance (MR) imaging showed a clival tumor appearing as isointense on T1-weighted image and slightly hypointense compared with normal brain on T2-weighted image. No connection between the normal pituitary gland was observed. Pre-operative diagnosis was chordoma. By a transsphenoidal approach assisted with neuro-endoscopy, we performed a partial removal of the tumor. No connection between the normal pituitary gland and the tumor was found. Histopathological analysis showed a pituitary adenoma.

As demonstrated by our case report, differential diagnosis of a clival tumor must include consideration of an ectopic pituitary adenoma.

Key words: ectopic pituitary adenoma, clivus, neuro-endoscopy, TSS

I. はじめに

異所性下垂体腺腫は非常に稀ではあるが、その中でも鞍上部や蝶形骨洞内には比較的多いとされている。今回我々は、斜台部に発生したと思われる極めて稀な異所性下垂体腺腫の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

II. 症 例

〈患者〉 54歳 女性

主 訴: 頭痛

既往歴: 高脂血症

現病歴: 2003年11月、頭痛を主訴に近医受診し、MRIにて下垂体腫瘍を指摘され、2003.12.4精査・加療目的に当院を紹介された。

入院時所見:

身長154cm、体重54kg、意識清明で、視野障害も含めて神経学的異常所見は認めなかった。下垂体ホルモン基礎値は、GH: 0.8ng/ml、LH: 16.7 μ IU/ml、FSH: 57.9 μ IU/ml、ACTH: 43.0pg/ml、prolactin: 2.8ng/ml、TSH: 0.6 μ IU/mlと異常はなく、腫瘍マーカーも陰性であった。

神経放射線学的所見

斜台部上2/3に、MRI T1強調画像で等信号、T2強調画像で等信号かつ一部まだら状に高信号な腫瘍性病変を認め、下垂体は右上側方に圧排されていた (Fig. 1, 2)。

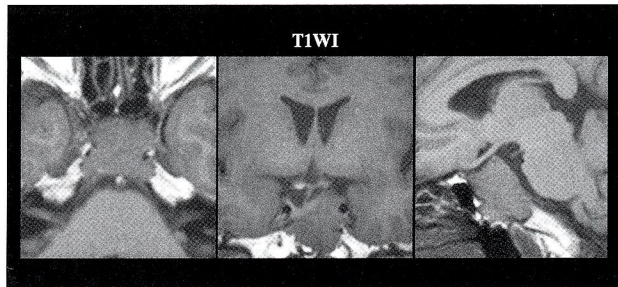


Fig. 1 術前MRI (T1強調画像)
斜台上2/3にisointensity mass。これにより、正常下垂体は右上側方に圧排されている。

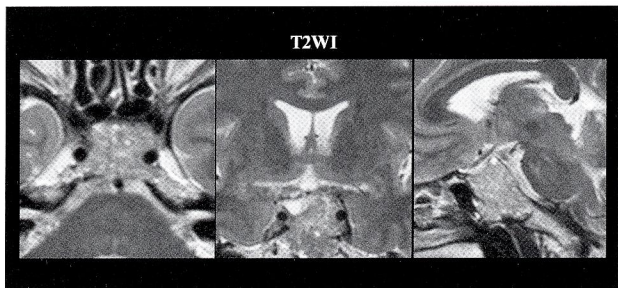


Fig. 2 術前MRI (T2強調画像)
同部位にisointenseで、一部まだら状にhigh-intense。

Gd-DTPA後T1強調画像で不均一に造影されており、均一に造影される正常下垂体とは連続性を認めなかった (Fig. 3)。頭部CT、頭蓋断層撮影では、斜台上部の骨破壊

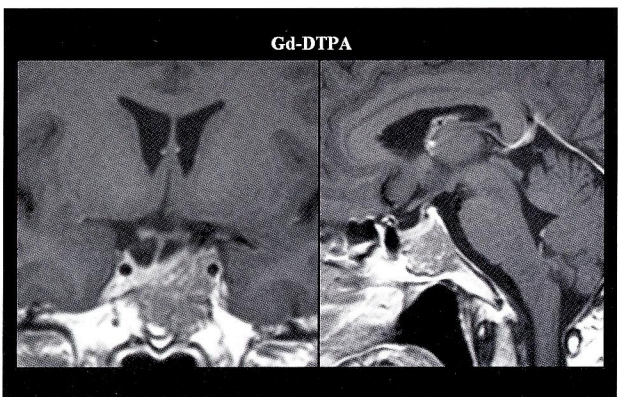


Fig. 3 術前造影MRI (Gd-DTPA)
不均一にenhanceされ、正常下垂体との連続性はない。

壊を認めた (Fig. 4)。TlCl-SPECTでは、斜台部の病変に一致したuptakeを認めた (Fig. 5)。

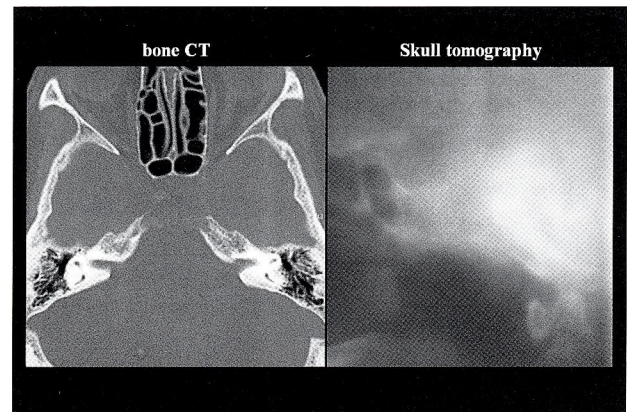


Fig. 4 術前Bone CT (左)、Skull tomography (右)
斜台上部の骨破壊像

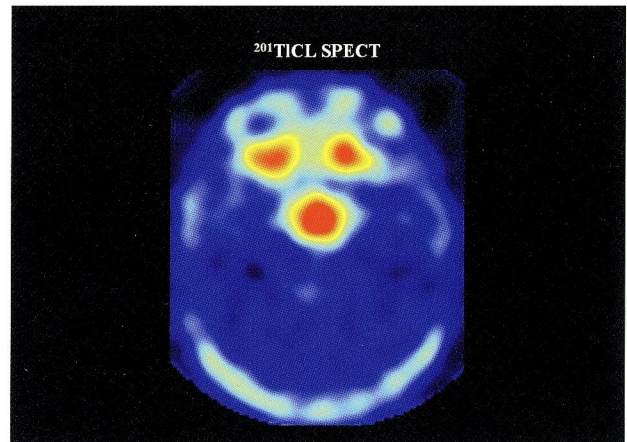


Fig. 5 術前²⁰¹TlCl-SPECT

入院後経過

これらの検査結果より、chordomaを第一に考え、生検目的に手術を施行した。

手術所見

手術は、内視鏡支援下に経蝶形骨洞法にて手術を行った。蝶形骨洞を開放すると、腫瘍が露出されていた。腫瘍はやわらかく、易出血性で、内部に骨片を認めた。腫瘍上方に硬膜に包まれた正常下垂体と思われる組織を認めたが、腫瘍組織との連続性はなかった。

病理所見

小型の細胞がmonotonousな増生を示し、腺管構造を認め、pituitary adenomaの所見であった (Fig. 6)。

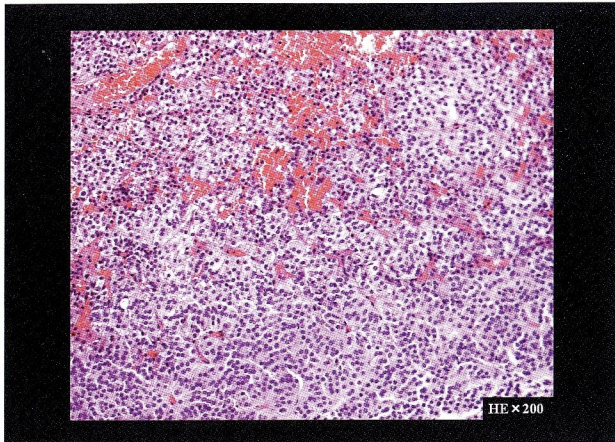


Fig. 6 病理所見 (HE×200)
 摘出標本病理組織像では、腺管構造が見られ、adenomaの所見であった。

術後経過

術後MRIでは、正常下垂体は残存し、腫瘍は部分摘出にとどまった。術後、ホルモン基礎値は、すべて正常であった。残存腫瘍に対しては、今後GKRSなどを考慮中である。

Ⅲ. 考 察

過去、異所性下垂体腺腫の報告は86例あるが、鞍上部、蝶形骨洞内でそれぞれ30例と最も多い。また、86例の中で、下垂体ホルモン異常を示したものは65例 (76%) となっており、functioning adenomaが圧倒的に多い^{1,2)} (Table 1, Fig. 7)。

Location	Hormone	
	Functioning	Non-functioning
Suprasellar	21	9
Sphenoid sinus	24	6
Cavernous sinus	7	1
Clivus	6	1
Nasopharynx	2	2
Superior orbital fissure	2	0
Sphenoid wing	0	1
Petrous temporal bone	0	1
Third ventricle	1	0
Sellar floor	1	0
Temporal lobe	1	0
Total	65	21

Table 1 Reported cases of ectopic pituitary adenoma
 文献1の表を改変

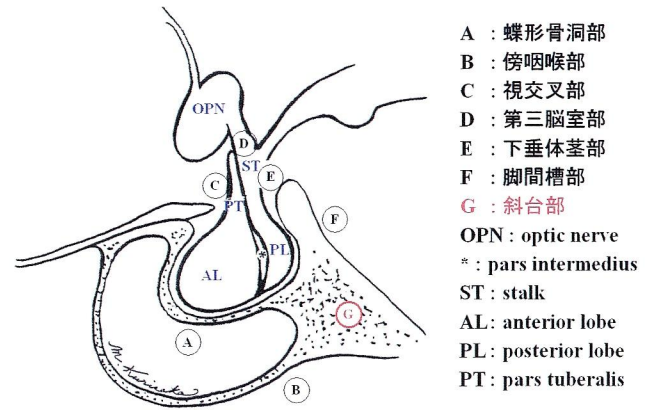


Fig. 7 異所性下垂体腺腫の好発部位
 文献2の図を改変

斜台部に発生した異所性下垂体腺腫は、検索しえた範囲で7例の報告があり、今回我々の症例を含め8例となった。これらを文献的に考察すると、発生年齢は40歳から80歳で、平均年齢58歳である。性別は男性4例、女性4例であった。ホルモン検索の結果、8例中6例 (75%) が、PRL産生腫瘍であり、functioning adenomaであることが多い。他の下垂体ホルモン産生腫瘍の報告はなかった。下垂体ホルモン値で異常を示さなかったnon functioning adenomaは、我々の症例を含め、わずか2例であった³⁾⁻⁹⁾。

異所性下垂体腺腫の発生機序としては、胎生期にRathke's pouchが原始口腔から漏斗に向かって成長していく過程で、このpouchの一部が残存することにより、その残存部位から下垂体前葉組織が増殖して腺腫を形成するものと考えられている¹⁰⁾。

異所性下垂体腺腫と診断するためには、腫瘍摘出による組織診断の確定とともに術前のMRIで正常下垂体と腺腫とが明らかに離れて存在するか、または腺腫摘出後のfollow-up MRIでトルコ鞍内に正常下垂体が存在し、かつ術後正常な下垂体機能が保持されていることがcriteriaとされている。

本例の術前MRIでは、正常下垂体と思われる組織と、腫瘍組織との境界がはっきりしており、presellarに蝶形骨洞を認めた。また、術中所見より、腫瘍組織の上方に正常な硬膜を認め、腫瘍組織と正常下垂体との連続性はないものと思われた。術後のMRIではやはり、正常下垂体と腫瘍組織の境界がはっきりしており、術後の下垂体ホルモンもすべて正常であった。これらから、斜台部異所性下垂体腺腫と診断した。

蝶形骨洞内から発生した可能性についてだが、この症例では、presellarに蝶形骨洞があり、斜台部に発生した異所性下垂体腺腫が、infrasellarに進展したものと考えたが、presellarだけでなく、infrasellarにも蝶形骨洞が存在した場合、蝶形骨洞内から発生した異所性下垂体腺腫の可能性もあるだろうと思われる。

IV. まとめ

今回我々は、斜台部に発生した異所性下垂体腺腫の1例を、文献的考察を加えて報告した。斜台部腫瘍の診断の際には、異所性下垂体腺腫も疑うべきと考えられた。

文 献

- 1) Koichi M, Yoko N, Hirofumi N, and Satoshi N: Ectopic growth hormone-releasing adenoma in the cavernous sinus. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 44: 380-385, 2004
- 2) 栗坂昌宏: 異所性下垂体腺腫. *Clinical Neuroscience* vol. 18 No. 1: 87-89, 2000
- 3) Anand VK, Osborne CM, Harkey HL 3rd: Infiltrative clival pituitary adenoma of ectopic origin. *Otolaryngol Head Neck Surg* 108: 178-183, 1993
- 4) Arnesen M, Scheithauer BW: Aggressive small cell tumor of the skull base. *Ultrastruct Pathol* 18: 191-197, 1994

- 5) Ballaux D, Verhelst J, Pickut B, De Deyn PP, Mahler C: Ectopic macroprolactinoma mimicking a chordoma: a case report. *Endocr Relat Cancer* 6: 117-122, 1999
- 6) De Witte O, Massager N, Salmin I, Meyer S, Doods G, Brotchi J: Ectopic prolactinoma in the clivus. *Acta Chir Belg* 98: 10-13, 1998
- 7) Mount SL, Taatjes DJ, Trainer TD: Ultrastructural study of a pituitary adenoma (prolactinoma) within the clivus bone using immunoelectron microscopy. *Ultrastruct Pathol* 17: 637-642, 1997
- 8) Shenker Y, Lloyd RV, Weatherbee L, Port FK, Grekin RJ, Barkan AL: Ectopic prolactinoma in a patient with hyperparathyroidism and abnormal sellar radiography. *J Clin Endocrinol Metab* 62: 1065-1069, 1986
- 9) Wong K, Raisanen J, Taylor SL, McDermott MW, Wilson CB, Gutin PH: Pituitary adenoma as an unsuspected clival tumor. *Am J Surg Pathol* 19: 900-903, 1995
- 10) Lloyd RV, Chandler WF, Kovacs K, Ryan N: Ectopic pituitary adenomas with normal anterior pituitary glands. *Am J Surg Pathol* 10: 546-552, 1986