

脳脊髄液漏出症へのあらたな治療戦略

尾道市立市民病院 脳脊髄液漏出症治療センター

土本 正治, 守山 英二, 岩戸 英仁, 岡 哲生

[症例報告]

脳脊髄液漏出症へのあらたな治療戦略

尾道市立市民病院 脳脊髄液漏出症治療センター

土本 正治, 守山 英二, 岩戸 英仁, 岡 哲生

要 旨 脳脊髄液漏出症の難治例もしくは、局麻下での自家血硬膜外注入困難な症例に対して、直視下で大後頭孔から環椎頭側の背側硬膜を露出し、両側椎骨動脈が走行する外側硬膜外腔にサージセルパッチを施行した。この方法では、両側の髄液漏出ポイントの閉鎖と、硬膜外腔への髄液流出路を塞ぐことが可能となる。髄液漏出ポイント近傍での処置には、後頭骨の一部を削除しなければならないが、安全でかつ特別な手技も必要とせず、脳脊髄液漏出症の完治が期待できると思われた。

Key words: 脳脊髄液漏出症, 髄液瘻閉鎖術, 開頭術

初めに

脳脊髄液漏出症 (cerebrospinal fluid leak 以下, CSFL) の治療法は、現在自家血硬膜外注入療法 (epidural blood patch 以下, EBP) がスタンダードな治療とされている (2016年4月より保険適応)¹⁾。しかし CSFL を EBP のみで完治させることが、困難な症例もある。自験例 (年間約500回の EBP 施行例) でも、かなりの症例で複数回の治療を必要としている。今回難治例に対して、直視下で頭蓋頸椎移行部 (大後頭孔-環椎 C1) の背側硬膜を露出させ、左右の外側硬膜外 (特に椎骨動脈 V3-V4 portion) にサー

ジセルアブソーバブルヘモスタット (以下サージセル) を挿入、漏出近傍部への癒着を生じさせて髄液漏を閉鎖することの有効性について検討した。

対象

CSFL と診断され、C1/2 穿刺による EBP で効果を一時的に認めたが、再発を繰り返した6症例、穿刺が局所麻酔下では困難と思われた2症例と他の手術の際に簡単に処置が追加できそうな1症例の計9例 (男性5例, 女性4例) を今回の治療対象として選んだ (表1)。

表1 手術症例一覧

	性別	年齢 (手術時)	EBP 歴 (回数)	初 EBP から手術までの期間	経過	特記事項
症例 1	女性	40 歳代	0	—	再発なし	左 C2 硬膜外神経鞘腫 (無症候性), オペ後 CSFL の症状は消失
症例 2	女性	60 歳代	0	—	再発なし	持続硬膜外注入で効果あり てんかん発作あり, EBP 不能で直達手術
症例 3	男性	50 歳代	1	11 ヶ月	再発なし	持続硬膜外, EBP で効果あり, てんかんあり, CSFL 再発で手術
症例 4	女性	40 歳代	23	7 年	再発なし	交通事故, 他院8回, 当院 15 回の EBP 歴あり
症例 5	男性	50 歳代	7	4 年	再発なし	交通事故
症例 6	男性	10 歳代後半	11	3 年	再発なし	頭痛, 倦怠感 不登校 (中1より)
症例 7	男性	70 歳代	5	2 年 9 ヶ月	再発なし	頭痛発作, 本人の手術希望有
症例 8	男性	40 歳代	10	8 年 7 ヶ月	再発なし	労災事故
症例 9	女性	40 歳代	6	4 年	再発なし	他施設で 2 回 EBP, 当院で 4 回 EBP

New surgical approach of Cerebrospinal fluid leak
 Department of Neurosurgery and CSFleak Treatment Center
 Onomichi municipal hospital
 Shoji Tsuchimoto, Eiji Moriyama, Eiji Iwado, Tetsuo Oka

方法

全身麻酔下、伏臥位で手術。症例1以外では、大後頭孔に接した後頭骨を部分切除し、大後頭孔縁から環椎C1上端までの硬膜を露出させ（図1，2），左右硬膜外側をそれぞれ剥離し、硬膜外腔に吸収性局所止血材であるサージセルを挿入し、さらにフィブリンを注入する方法をとった。なお術中にはMEP（motor evoked potential）をモニターし安全性を担保した。

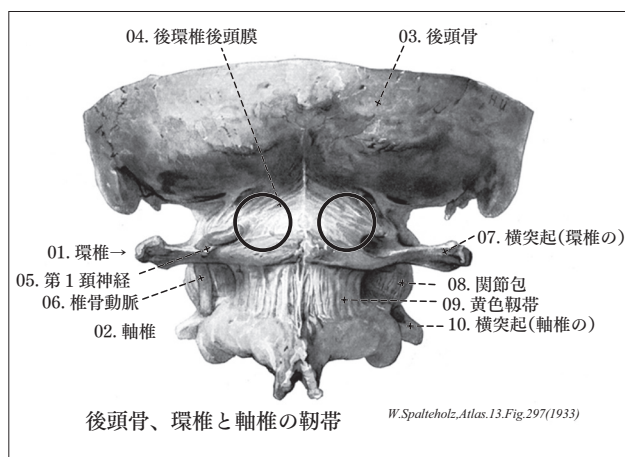


図1 サークルライン内の硬膜外を剥離

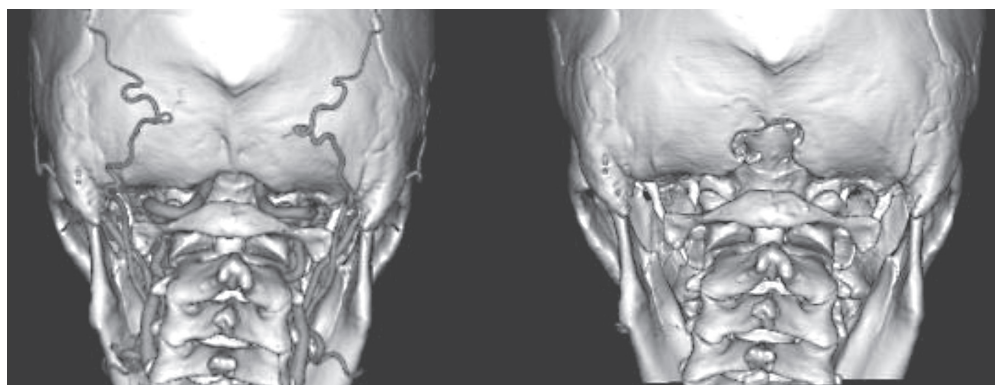


図2 椎骨動脈の走行と後頭削除範囲

症例提示

症例1：40才代 女性

頭痛，めまいのため，CSFL疑いで全脊椎MRIを施行。偶然左側C2神経線維腫が発見された。C2レベルで頸髄は硬膜外から著しく圧迫されており（図3），この部位での自家血硬膜外注入は不可と判断。まず腫瘍摘出を優先し，腫瘍摘出の際に直視下で左側C2から中枢側左側C1近傍までの左側硬膜外にサージセル，フィブリンを注入。術後頭痛やめまい（CSFLに伴う）は消失，術後2年間CSFLの再燃なし。

症例2：60才代 女性

既往：てんかん，頸部脊柱管狭窄症術後

てんかんで加療中にCSFLと診断された。症状は下肢の脱力発作。持続硬膜外人工髄液注入で症状は軽快していた。脊髄造影中にけいれん発作をきた

したため，局麻下でのEBPが困難と思われ，髄液漏閉鎖術を施行。手術方法は後頭骨を小開頭し，大後頭孔から環椎上端の硬膜を露出させ，左右の硬膜外を露出させ（図1，2），硬膜外腔にサージセルを挿入し，さらにフィブリンを注入した。術後症状は消失した。

以下の症例はすべて症例2と同様な手術を施行

症例3：50才代 男性

既往：難治性 てんかん，膠原病

CSFLとして局麻で一度EBPを施行し，その後再発をきたし，またてんかん発作のコントロールも不良となっていた。EBPを希望していたが，てんかん発作も頻発したため髄液漏閉鎖術を施行した。

術後症状（ふらつき，長時間の立位困難）は消失

症例4:40才代 女性

既往:特記事項なし 交通事故

頭痛, 倦怠感, 歩行障害, 摂食障害あり. 過去7年間に22回の EBPを受け, いずれも効果の持続が短かった症例. 髄液漏閉鎖術後3日目に症状が消失. ADLも車椅子から独歩可能になって, 術後8日目に退院した.

症例5:50才代 男性

既往:交通事故

過去4年間に7回 EBPを受け, その効果が短時間. 就労にも支障があり, 手術を希望され施行.

術後症状(頭痛, 頸部痛, 耳鳴)は消失

症例6:10才代後半の高校生 男性

症状は頭痛, 倦怠感, 不登校, 睡眠障害(朝起きれない), 過去3年間に11回 EBPをうけたが, いずれも効果が一時的で通学困難となり, 家族の希望で手術を選択. 術後症状は軽快(通学可能となった)

症例7:70才代 男性

頭痛発作で CSFLと診断, 過去2.5年で5回の EBP歴あり, 根治希望で手術を施行.

術後症状(頭痛)は消失

症例8:40才代 男性

労災(転落事故), 過去7.5年で10回の EBP歴あり,

いずれも効果が一時的. 早期就労復帰のため, 手術を選択.

術後症状(頭痛, 後頸部痛, 倦怠感)は消失

症例9:40才代 女性

頭痛発作で発症, 過去他院で2回, 当院で4回の EBP歴あり. 頭痛, 記銘力障害, 倦怠感のため就労困難, 根治希望あり.

術後症状(起立性頭痛, 倦怠感, 記銘力障害, 嘔気)は軽快.

結果

手術施行順に症例を表記(表1), すべて術後1か月以上経っている症例である. 症例1以外は, 手術時間は1時間程度, 術後8日目で退院. 術後の安静は不要としている. 退院時には, 軽度創部痛のみで, 術前の症状は軽快もしくは消失している. 特に手術に伴う合併症はなかった.

考察

脳脊髄液(CSF)の役割には, 各種サイトカインの運搬, 交換, 搬送や, 脳の栄養, 代謝, 免疫反応にも関わるとされ, その意義にはまだ不明なことが多い. しかしながら髄液漏出が多彩な症状を引き起こしているのも事実である²⁾. CSFL患者の症状は多岐にわたる訴えがあり, また症状がありながらも, 種々の精査では, 異常は指摘されてはいない.

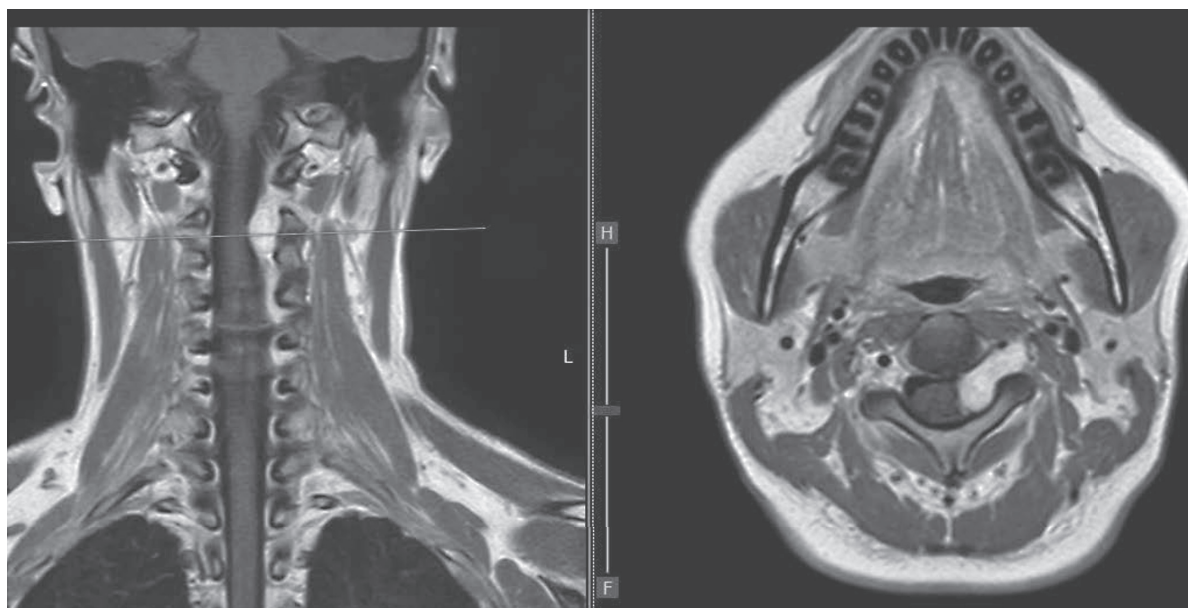


図3 症例1の造影 MRI C2左側硬膜外腫瘍あり

症状としては、起立性頭痛、眩暈以外にも、倦怠感、背部痛、歩行障害、耳鳴、難聴、うつ症状、睡眠障害、覚醒障害、消化器症状（腹痛、嘔気）など多彩な症状がある。そのため脳神経内科、整形外科、耳鼻科、眼科、消化器内科、循環器科、小児科、心療内科、精神科などの受診歴があり、ドクターショッピングと思われる場合も多い^{3) 4)}。最近では小児の不登校の原因となっている症例が増えてきた⁵⁾。

当院では、問診で CSFL の疑いがあれば、全脊椎 MRI を施行している。

脂肪抑制画像で硬膜嚢背側硬膜外に FESS (fringed epidural space sign) などの水信号を認めれば、CSFL 疑いありと診断している。その後腰部での持続硬膜外人工髄液注入療法を施行し、症状の軽快もしくは消失をえられれば、CSFL と確定診断する。

CSFL の治療は、急性期には安静臥床、輸液などの処置で対処出来ることもある。保存的加療で症状が改善しなければ、EBP がスタンダードな治療とされている。

現在 EBP は多くの施設では、漏出部位が体幹部の脊髄神経根近傍からとの考えから、下位頸椎、胸椎や腰椎などで施行されている。しかし真の漏出部位とかけ離れた部位での EBP のため、治癒率は今一步の状況である。三浦らによれば、CSF は脊髄レベルでは、脊髄神経根周囲のリンパ管からの吸

収が主体であると報告をしている⁶⁾。確かに脊髄神経根近傍のリンパ管付近での EBP は、髄液がリンパ系への吸収を阻害することにはなるが、真の漏出部位を閉塞させてはいない。

共著の守山らによれば⁷⁾、CSFL の多くは椎骨動脈 (VA) が頭蓋内に貫通する部位での硬膜、くも膜の脆弱性が、髄液の漏出をきたしていると推察している (図 4)。

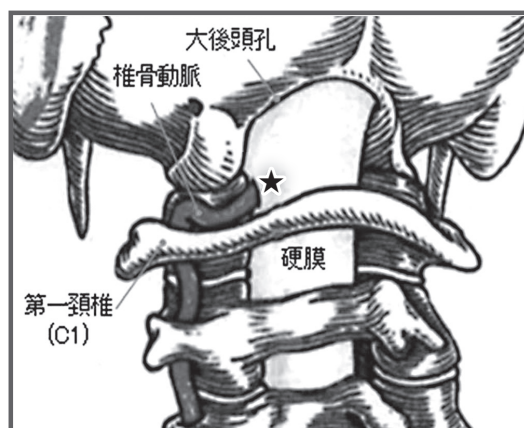


図4 ★漏出ポイント (守山の提唱)

CSFL では、全脊椎 MRI の脂肪抑制で胸椎背側に FESS 所見を認めている。この水成分の存在部位が漏出部位ではなく、椎骨動脈の硬膜貫通部より尾側の胸椎レベルまで、水成分が引き込まれ貯留していた部位の可能性がある。

脊髄造影では、椎骨動脈が硬膜を貫通する部位での漏出を証明できる症例や、EBP の際、頭蓋内

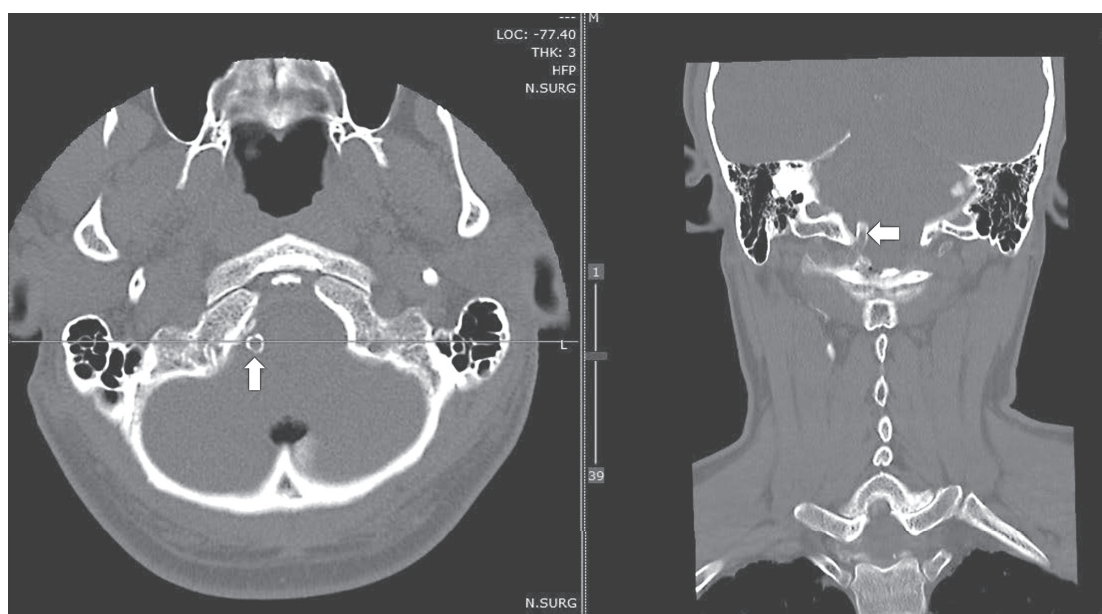


図5 EBP 後 CT 頭蓋内右椎骨動脈の周囲に注入血液あり

椎骨動脈の周囲に注入血液が描出されている症例（図5）もあり、そのため、この漏出ポイント近傍へのEBPが一番効果的だと思われる。当院では基本的には、C1/2レベルから硬膜外針を穿刺し、環椎上端よりも頭側硬膜外への自家血注入（できるだけ漏出ポイント近傍へ）を基本としている。

C1/2穿刺を安全にするために、自施設ではバイプレーンの透視下で穿刺施行し、これまで穿刺針による脊髄損傷のトラブルはない。局麻下で十分にこの部位へのEBPが施行出来たと思われた症例でも、再燃の問題は抱えている。治癒までには複数回のEBPを要する場合もあり、今回そのような難治症例に対して、新たな治療を試みたところ、かなり満足できる結果が得られた。

通常開頭術の際、開頭骨縁からの硬膜外出血防止の目的で、手術用止血材（サージセルなど）を硬膜外に挿入することは、通常の止血処置として行なわれる。開頭術後に、何らかの理由で再開頭をしてみると、開頭骨縁と直下の硬膜の癒着が、かなり強固となっていることを経験する。これをもとに髄液漏出部位での強固な癒着を期待し、直視下で大後頭孔から環椎上端までの硬膜を露出し、椎骨動脈が硬膜に貫通する近傍部の外側硬膜外にこの処置（サージセル挿入）を施行してみた。尚椎骨動脈の頭蓋内貫通部を露出させるのは侵襲もあり、VAが横突孔から大後頭孔に至るまでの硬膜外の経路（V3-V4junction）を、塞ぐこととした。

体内に留置されたサージセルは、2週間後には吸収されるといわれている。そのため2週間後に症状の再燃がなければ、パッチ挿入部の硬膜外組織には癒着が完成し、髄液漏閉鎖が完成されていると思われる。

CSFLの患者ではMRIの脂肪抑制画像で、C1上端レベルの軸位像（図6）では椎骨動脈近傍に水信号を認め、また横突孔内の椎骨動脈を包むように水信号も認めている。このことは漏出した髄液は脊柱管硬膜外のみならず、横突孔内にも流れて排出され、さらに横突孔内の神経根周囲のリンパ系にも吸収されていると思われる。

今回の手技では、漏出ポイントの近傍を閉鎖するだけではなく、漏れ出た髄液が硬膜外腔へ引き込まれることも防止、すなわち背側硬膜外のみならず、椎骨動脈の走行路であるV3においても、漏出した髄液の流出路を塞ぎ得ていると思われる。

なお術中には、直視下で硬膜外腔からの髄液漏出の視認はできていない。これは髄液の持続的漏出には、硬膜外腔への吸いこみ圧が大きな要素であり、全身麻酔での陽圧呼吸下、伏臥位の条件下では脊椎静脈叢が拡張し、硬膜外圧が上昇し、そのため、硬膜外腔への髄液の吸い込み圧が低下しているためだと思われる。さらに一部でも脊柱管が大気圧下に解放されれば、頭蓋内圧（脊髄硬膜嚢内圧も含め）と脊髄硬膜外圧の圧較差が低下しているかもしれない。

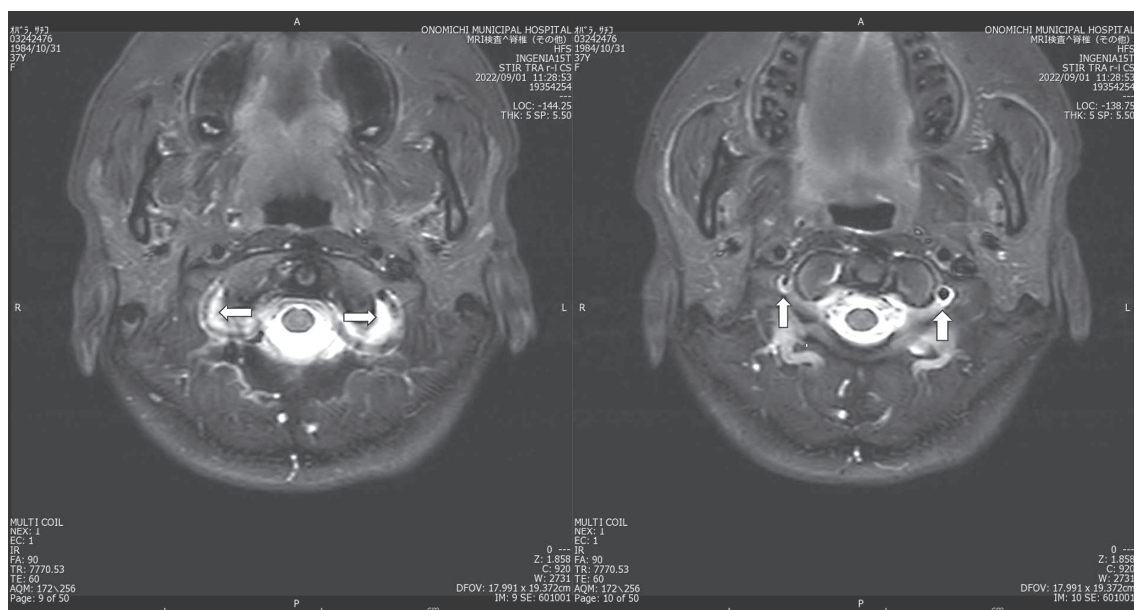


図6 環椎軸位 MRI 脂肪抑制 矢印は椎骨動脈周囲の水信号

脳脊髄液漏出症の治療の根幹は、漏出ポイントの閉鎖が一番ではある。これまでの他施設の治療は、髄液がリンパ系に吸収される経路（体幹部の神経根周囲の硬膜外での）へのパッチであり、漏出ポイントを放置しているため、再燃の可能性を残していた。

今回の直視下髄液漏閉鎖術の利点としては、漏出ポイントの処置と流出経路を両側性に同時に処理できる。また早期離床もはかれ、漏出防止の効果も比較的早期に判定できることも特徴である。

この手技では上位頸髄の硬膜外を直視下に観察できるため、安全なパッチ操作が可能になると思われる。

また C1/2 穿刺が解剖学的に困難な症例（C2 の棘突起が巨大な場合など）では、EBP よりも、直視下でのパッチのほうが安全性や確実性が高く、今後は適応の拡大も考慮出来ると思われる。

この手技での欠点をあげるとするなら、全身麻酔が必要なことと、操作に伴って後頭骨に付着した小後頭直筋、大後頭直筋などの筋肉群への筋損傷の可能性もあるかもしれない。

また若年者では成長に伴い、C1 付近の頭蓋外椎骨動脈の走行にも変化を生じる可能性もあり、今回の手技のみでは、再燃のリスクを防ぎえないかもしれない。そのため対象症例の年齢も考慮すべきと思われる。

結語

直視下で環椎頭側の両側硬膜外へのサージセルパッチは、CSFL への有用な手技である。

参考文献

- 1) 橋本洋一郎, 高松孝太郎, 和田邦泰: 脳脊髄液減少症 / 脳脊髄液漏出症の治療戦略 Pharma Medica 39:41-45, 2021
- 2) 篠永正道: 脳脊髄液減少症（低髄液圧症候群）小児内科 54: 265-269, 2022
- 3) 篠永正道: 脳脊髄液減少症研究の現況と展望 日本臨床 71:1871-1878, 2013
- 4) 篠永正道: 脳脊髄液減少症と心身症のかかわり Jpn J Psychosom Med 54:1026-1033, 2014
- 5) 守山英二, 石川慎一, 藤原倫昌: 小児期脳脊

髄液漏出症診療の現況 小児の脳神経外科 45: 332-339, 2020

- 6) 三浦真弘 内野哲哉 高橋明弘: 脳脊髄液に関する最新の知見—髄液の産生, 循環, 吸収について—経リンパ管吸収路を中心として 脊椎脊髄ジャーナル 28:694-703, 2015
- 7) Moriyama E, Ishikawa S: Dural entry point of the vertebral artery: An overlooked route of spinal CSF leak NMC Case Rep J 9:1-5, 2022

