

仙骨部嚢胞破裂による低髄液圧症候群の1例

鈴木伸一¹ 川口正二郎¹ 岩田牧子¹ 池西優理子¹ 三浦真弘²¹ 社団総生会麻生総合病院脳神経外科² 大分大学医学部医学系研究科生体構造医学講座

緒言

筆者らは、仙骨部嚢胞 (sacral meningeal cyst: SMC) を有している患者が急激な起立性頭痛を呈し、その原因として SMC が後腹膜内に破裂した所見を認めた1症例を経験した。この際、硬膜外自家血注入 (epidural blood patch: EBP) にて一時的に頭痛が消失した。仙骨部に嚢胞が増大することが多く、EBP にて一時的に頭痛が改善した機序を髄液循環、吸収路の面から解剖学的考察を加えて報告する。

症例

45歳女性、事務職。以前より頻尿気味であったため、大学病院を受診し、MRI 画像にて骨盤腔内に直径 12 cm の SMC を有し (Fig. 1)、この SMC が膀胱圧迫の原因と言われていた。平成24年9月突然の起立性頭痛を認め通勤できない状態になり当院を受診。この際、膀胱直腸障害など神経学的異常は認めず、安静臥床と点滴治療にて頭痛は鎮静。しかし、起立位にて後頸部痛が再燃するため精査を行なったところ、頭部 MRI にて脳硬膜の造影増強効果と脳脊髄液圧 0 cm H₂O と低値を示し、低髄液圧症候群の状態を呈した。ミエロ CT では、仙骨部より骨盤腔内に連続する直径 4.5 cm の SMC が認められ、経時的に嚢胞内に造影剤が流入する像 (Fig. 2) が認められた。また、ミエロ CT でも胸腰椎移行部付近で硬膜外に若干の造影剤漏出が認められたため、平成24年10月12日 L2/3 より EBP 30 mL を施行。直後より頭痛の改善が顕著であったため以後職場復帰した。

考察

1. Spinal meningeal cyst の分類、病因、発生機序について

1938年より多くの報告がなされているが、同症の組織学的な分類は依然共通の見解に至っておらず、“extradural

cysts” “pouches” “diverticula” などさまざまな分類が依然混在する。しかし、1988年に Nabors ら¹⁾ によって CT myelography, MRI 画像、手術所見・組織学的所見などを総合して新たに3型の分類に整理されている。本症例は、嚢胞内に神経根を有しており、分類上 type 2: extradural meningeal cysts with spinal nerve root fibers と考えられる (Fig. 3)。病因としては、遺伝性疾患、先天奇形との合併が多く報告されており、Ehlers-Danlos syndrome, Marfan's syndrome, Klippel-Trenaunay syndrome などの合併報告がされている²⁾。嚢胞増大の要因としては、①hydrostatic pressure, ②嚢胞内浸透圧差、③嚢胞壁からの分泌などが考えられているが、これにさらに ball-valve mechanism が加わることで嚢胞は増大する³⁾。

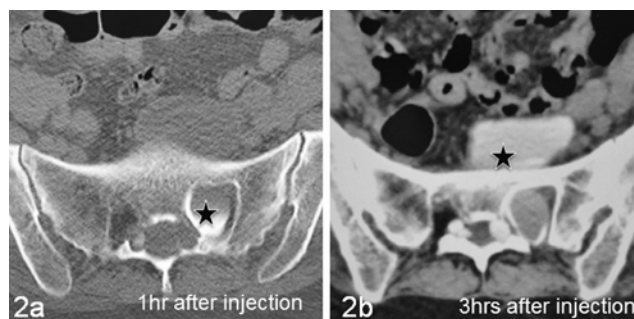


Fig. 2 Axial CT myelography shows contrast medium filling into the sacral cyst at post-injection 1 hr (2a) and 3 hrs (2b). Contrast medium in the meningeal cyst (★) was extended from the sacral bone to the pelvic cavity.

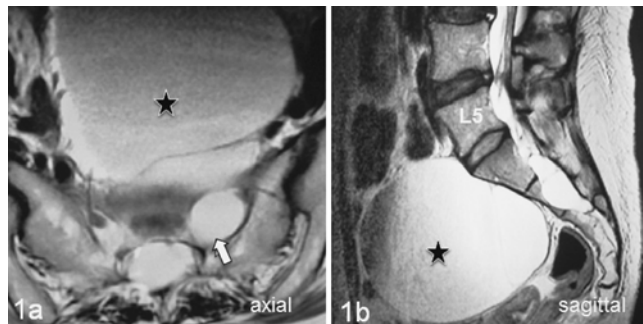


Fig. 1 T2-weighted axial (1a) and sagittal (1b) MR images depict wide sacral cyst (★) extending into pelvis.

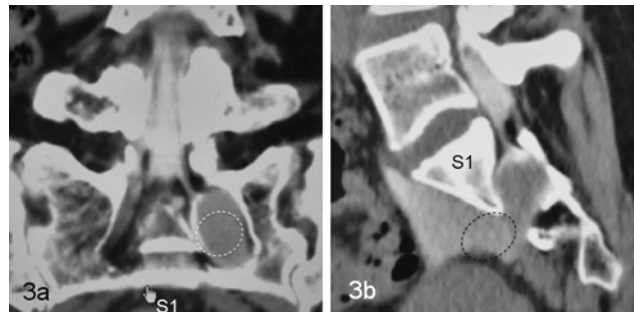


Fig. 3 CT myelography with coronal (3a) and sagittal (3b) views. Dotted circles indicate a deviation from the extradural meningeal cyst at the first sacral spinal level (S1).

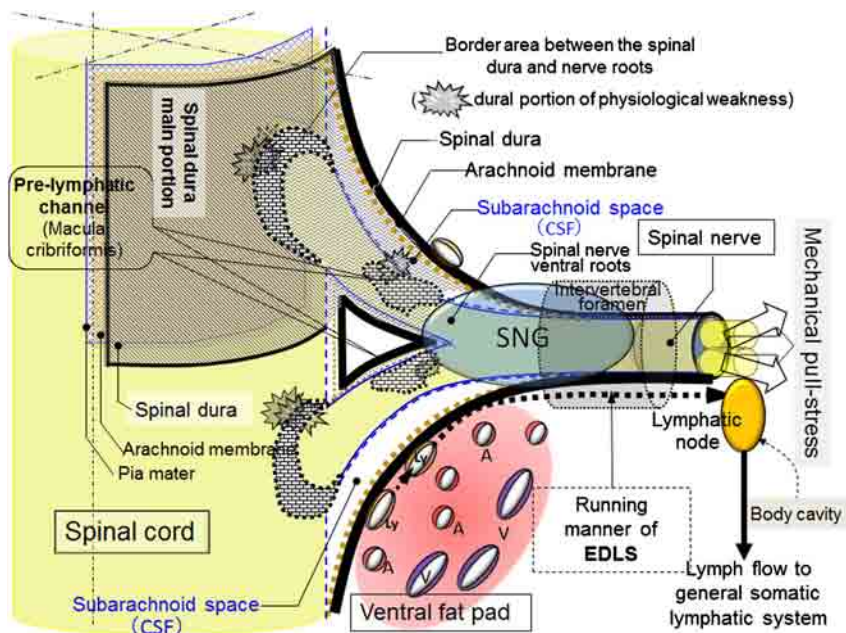


Fig. 4 A schematic drawing of the relation between the extra-vascular fluid pathway and epidural lymphatic system (ELS) described by Miura (2010)⁴⁾

2. SMC の発生場所と髄液循環吸収について

嚢胞が巨大化するのには、主に腰部、仙骨部であり、胸椎レベル、特に上部胸椎、頸椎では、ほぼ同様の嚢胞を認めない。従来の報告では、髄液循環、吸収路を含めた嚢胞増大機序については詳細には論じられていない。三浦ら⁴⁾によれば、髄液側副吸収路の一つとして髄膜内 pre-lymphatic channel (PLC) を介する経リンパ管吸収路の存在 (Fig. 4)、また腰仙部で未発達の硬膜外リンパ系 (EDLS) の形態学的特徴から、仮に同髄膜部で髄液漏出が生じたとしても即座に CSF 経リンパ管吸収の発動が著しく遅延することを実験的に実証している。この PLC は、EDLS の発達する頸・上部胸髄領域のみで出現する特殊構造ではなく、腰仙骨髄膜でも未発達であるが出現する。従って、積極的な髄液側副排出路を持たない腰仙骨部では、髄膜内に滞留しやすい髄膜環境や髄膜の生理的脆弱性も加えて、嚢胞が増大しや

すい形態学的特徴を有している髄膜領域と考えられる。

3. 髄液漏と epidural blood patch (EBP) について

当初、胸腰椎移行部 CT にて髄液漏出の可能性が疑われ、SMC 症状とあわせて L2/3 に EBP を施行し起立性頭痛は消失したが、その後、約 6 ヶ月経過して、嚢胞増大とともに起立性頭痛の再燃したことから、今回の髄液漏出については、胸腰椎移行部からの髄液漏出のみの症状ではなく、SMC の破裂に伴う頭痛が混在したと考えたい。EBP 後の頭痛消失機序は、EBP による硬膜外腔の圧上昇により一時的に SMC への髄液流入量が減少し、髄液産生量が SMC への流入量より上回り脳脊髄液圧が上昇した結果と考えられる。

結 語

SMC 破裂では中枢神経系への重篤な感染も考慮して、破裂にともなう急激な頭痛出現では外科的手術が不可欠と考えられた。また、SMC 術式では神経根周囲を十分に拡張することで one way valve に陥らない手術法 (チェックバルブメカニズム) の重要性も示唆された。

文 献

- 1) Nabors MW, Pait TG et al. 1988. Updated assessment and current classification of spinal meningeal cysts. J Neurosurg 68: 366-377
- 2) Durmaz R et al. 2009. Symptomatic foraminal extradural meningeal cyst. Turkish Neurosurg 19: 91-95
- 3) Asamoto S et al. 2013. Diagnosis and surgical strategy for sacral meningeal cysts with check-valve mechanism: technical note. Acta Neurochir (Wien) 155: 309-313
- 4) 三浦真弘ほか. 2010. 脳脊髄液減少症にともなう髄液漏出の発生機序と脊髄硬膜外リンパ管系との形態学的関係について—Epidural Blood Patch 療法の有効性検証も含めて—. リンパ学 33: 2-11

The CSF hypovolemia caused by a ruptured sacral meningeal cyst: a case report

Shinichi SUZUKI¹, Shoujiro KAWAGUCHI¹, Makiko IWATA¹, Mariko IKENISHI¹, Masahiro MIURA²

¹Department of Neurosurgery, Asao General Hospital,

²Department of Human Anatomy, Faculty of Medicine, Oita University

We describe the CSF leakage from a sacral meningeal cyst (SMC) which caused a severe orthostatic headache. A 44-year-old woman was admitted to hospital with the complaint of severe headache. By lying down, she could get some relief from her headache. MR image of the lumbosacral lesion depicted a wide cyst extending into the pelvis. Lumbar puncture yielded an opening pressure of 0 mm H₂O. By injecting her blood into the epidural space at L2/3 level, her headache gradually improved. It is supposed that Epidural Blood Patch stopped discharging on the SMC. The classification of SMC in the literature was indistinct, confusing. In 1988 Nabors et al. proposed a classification comprising three categories. The classification of SMC in this case is type 2 which is extradural meningeal cysts with spinal nerve root fibers. Factors which may cause enlargement of the cyst are: 1) the hydrostatic pressure of the cerebrospinal fluid, 2) osmosis of water into the cyst, and 3) secretion by the cyst wall.

There is enlargement of SMC in the lumbosacral meninges rather than cervical one. This reason may be the reason for the presence of extra vascular fluid pathway in the CSF circulation. Since there are few macula cribiformis in the lumbosacral region, CSF collateral absorption via the extra vascular fluid pathway (EVFP) could not be performed. It appears that rudimentary EVFP in the lumbosacral lesion predisposes enlargement of SMC.

Key words: sacral meningeal cyst, epidural blood patch, cerebrospinal fluid, extra vascular fluid pathway