 原 著

Chiari 奇形に伴った脊髄空洞症における cine MRI を用いた髄液流通障害の定量的評価

西川 節, 坂本 博昭, 北野 昌平,
白馬 明*, 森川 和要*, 中西 愛彦*

**Evaluation of Cerebro-Spinal Fluid Flow in Syringomyelia associated with Chiari Malformation
using Cine Magnetic Resonance Imaging**

by

Misao Nishikawa, Hiroaki Sakamoto, Syouhei Kitano,
Akira Hakuba*, Kazutoshi Morikawa*, Naruhiko Nakanishi*

from

Departments of Neurosurgery, Osaka City General Hospital
Departments of Neurosurgery, Osaka City University Medical School*

Most of the recent reports have suggested that cerebro-spinal fluid (CSF) flow disturbed by herniated cerebellar tonsils induces syringomyelia in adult type Chiari malformation. We investigated CSF flow dynamics at the foramen magnum using cine magnetic resonance imaging (cine MRI), to quantitatively estimate the improvement of CSF flow at the foramen magnum before and after decompressive surgery. Quantitative cine MRI was performed in 18 patients suffering from syringomyelia with Chiari malformation and 5 normal volunteers to evaluate CSF flow dynamics. As useful indices, we measured the maximum caudal flow velocity (max. flow velocity) and calculated the timescale of the maximum flow velocity to one cardiac cycle (% cardiac cycle). In all of the 18 cases who underwent expansive suboccipital cranioplasty, the neurological findings and syringomyelia improved after surgery. Before surgery the max. flow velocities in patients were significantly diminished in magnitude at the foramen magnum, compared with those in normal subjects. Before surgery the % cardiac cycles at the foramen magnum in patients were significantly diminished in quickness, compared with that in normal subjects. After surgery, the max. flow velocities and the % cardiac cycles approximated those of the normal controls. Thus, expansive suboccipital cranioplasty can effectively restore the disturbed CSF flow at the foramen magnum, and consequently result in reduction of the syrinx size. To-and-fro motion of the fluid in the syringomyelia before surgery diminished after surgery. We concluded that, to estimate the efficacy of surgical treatment, CSF flow dynamics at the foramen magnum should be evaluated. Cine MRI could be useful to study the progression of syringomyelia.

Key word: Chiari malformation, cine MRI, CSF flow, syringomyelia

Spinal Surgery 14 (1) : 11~18, 2000

はじめに

Chiari奇形に伴う脊髄空洞の発生には、小脳扁桃の下垂による大後頭孔部における髄液流通障害が大きく関与していることが広く認められるようになった〔2, 11,

12, 13, 15, 16, 17〕. この空洞発生の要因を取り除く治療方法として、著者らは狭小化した後頭蓋窩を拡大することによって髄液流通障害を改善させる手術法（後頭蓋窩拡大形成術）を考案した。また、Chiari奇形に合併した脊髄空洞症の治療方法の有効性を検討するにあた

(Received : August 16, 1999, Accepted : December 1, 1999)

大阪市立総合医療センター 脳神経外科, 大阪市立大学 脳神経外科* (連絡先: 西川 節, 〒534-0021 大阪市都島区都島本通 2-13-22 大阪市立総合医療センター 脳神経外科) Address reprint request to: Misao Nishikawa, M.D., Department of Neurosurgery, Osaka City General Hospital, 2-13-22, Miyakojimahondori, Miyakojima-ku, Osaka, 534-0021, Japan

Figure 1 Measurements of % cardiac cycle and maximum flow velocity in cine MRI
Photograph showing methods of measurements of % cardiac cycle (the time of maximum flow from R wave: A / R-R interval: B) and maximum flow velocity (the speed of maximum flow: C) on cine MRI.

り、大槽部くも膜下腔に癒着を伴うか否かなどの評価を行うことによって適切な治療方法を選択することができ、髄液流通障害が術後に正常化したか否かの治療の効果を判定を行うことが重要であると述べてきた [12, 15, 16, 17]。しかし、現在のところ髄液流通障害を非侵襲的に評価し、実際の定量的データを示した報告は少なく [1, 2, 5, 6, 9, 16]、著者らが行った cine magnetic resonance imaging (cine MRI) の方法は、定性的なものにすぎなかった。そこで、Chiari奇形に合併した脊髓空洞症において、cine MRIを用いて髄液流通障害を定量的に評価し、診断、治療効果の判定、脊髓空洞の発生機序の解明を試みた。

対象および方法

対象はChiari奇形にともなった脊髓空洞症例のうち術前、術後に cine MRIにおいて髄液流通障害を定量的に評価しえた18例（男性7例、女性11例、年齢15～41歳、平均31歳）である。手術は全例、後頭下開頭、環椎椎弓切除を行い、くも膜を損傷しないように硬膜形成を行い、さらに後頭骨の骨弁を用いて後頭蓋窩を拡大（後頭蓋窩拡大形成術）した [8, 15, 16, 17]。頭蓋内、

脊椎脊髄に異常のみられない5例（男性2例、女性3例、年齢15～39歳、平均30歳）をコントロール群とした。

方法は、1.5 Tesla Philips Gyroscan MRIを用いて、心電図同期、gradient echo法、TE 15～20 msec, TR 10～20 msec, Flip angle 15～30°, 15 scan/cycleに設定した cine MRIを行い、矢状断正中中部でMRIに内蔵されているソフトウェアにて画像にした [4, 5, 6, 9, 15]。

それぞれ髄液の流れの速度、その最大流速 (maximum flow velocity: cm/sec) と最大流速に達するまでのR波からの時間のRR間隔に対する割合 (% cardiac cycle) を術前後で検討した。基準線より上方 (+) は頭側への動きと、下方 (-) は尾側への動きを示した。一つの関心領域 (region of interest: ROI) 周辺において3回以上の測定を行い、平均値を計算した (Fig. 1) [2, 9, 10, 14]。画面上には頭側への動きを白く、尾側への動きを黒く描きださせた。ROIを大孔部前部くも膜下腔、大孔部後部くも膜下腔、Magendie孔、第3頸椎レベル前面のくも膜下腔、第3頸椎レベル後面のくも膜下腔、脊髓空洞内に設定した (Fig. 2) [2, 9, 14]。

Maximum flow velocity, % cardiac cycleを、各ROI

Figure 2 Regions of interests (ROIs)

ROIs were at the foramen of Magendie, the ventral subarachnoid space at the foramen magnum, the dorsal subarachnoid space of the foramen magnum, the ventral subarachnoid space at 3 rd. cervical spine level, the dorsal CSF space at the 3 rd. cervical spine level and in the syrinx cavity. Measurements was performed at 3 adjacent areas in each site.

において、術前、術後とコントロール群で比較し、Mann-Whitney検定を用いて検定した。

結 果

対象とした18例全例で術後に神経症状は改善し、かつMRIで脊髄空洞は著明に縮小した。手術中の所見として大槽部のくも膜にはいずれの例においても癒着はみられなかった。

Cine MRIの結果では大孔部前部くも膜下腔、第3頸椎レベル前面および後面のくも膜下腔では、術前後で髄液の最大流速と % cardiac cycleの一定の変化はみられず、コントロール群とも有意な違いはみられなかった。

Magendie孔での髄液の最大流速は、術前が0.58 ～ 0.98 cm/sec (平均 0.72 cm/sec, S.D. 0.12) で、この測定値はコントロール群に比べて有意に遅かった。術後は0.80 ～ 2.12 cm/sec (平均 1.28 cm/sec, S.D. 0.37) となりコントロール群の値に近づき両群間に有意な差はなくなった (Table 1)。大孔部後部くも膜下腔の髄液の最大流速は、術前が 0.75 ～ 1.96 cm/sec (平均 1.51

cm/sec, S.D. 0.27) で、この測定値はコントロール群に比べて有意に遅かった。術後は 1.45 ～ 2.50 cm/sec (平均 2.05 cm/sec, S.D. 0.33) となりコントロール群の値に近づき両群間に有意な差はなくなった (Table 1)。脊髄空洞内では空洞内容液の動きが著明であったが、術後は内容液の流速を測定できなくなった。Magendie孔の術前の % cardiac cycleは 22 ～ 40% (平均 31%, S.D. 2.1) で、この値はコントロール群に比べて有意に低かった。術後は 38 ～ 50% (平均 44%, S.D. 2.2) となりコントロール群の値に近づき両群間に有意な差はなくなった (Table 2)。大孔部後部くも膜下腔の % cardiac cycleは術前が 21 ～ 38% (平均 30%, S.D. 2.4) で、この値はコントロール群に比べて有意に低かった。術後は 33 ～ 50% (平均 44%, S.D. 2.3) となりコントロール群の値に近づき両群間に有意な差はなくなった (Table 2)。

<症例>

41歳の女性で、両上肢の筋力低下と知覚障害で発症した。後頭蓋窩拡大形成術を行い、術後、筋力低下と知覚

Figure 3 Cerebro-spinal fluid (CSF) flow wave form in a patient

Wave forms and ROIs were superimposed in one figure.

Upper collum: Preoperative CSF flow wave form.

Left: CSF flow wave form at the foramen of Magendie.

Center: CSF flow wave form at the dorsal CSF space at the foramen magnum.

Right: demonstrated CSF wave form in syring.

Maximum flow velocity increased after surgery.

% Cardiac cycle increased after surgery.

Although movement of the syring fluid could be detected before surgery, after surgery it could be hardly seen on cine magnetic resonance imaging.

障害は著明に改善し、脊髓空洞は著明に縮小した。Magendie孔、大孔部後部くも膜下腔、第3頸髄レベル後部くも膜下腔における髄液の流速を測定すると、術前はmaximum flow velocityは減少しており、% cardiac cycleは小さかったが、術後はいずれもコントロール群の値に近づいた (Fig. 3)。

考 察

髄液流通障害に関する検討は、du Boulay [3] にはじまり、1980年代後半以降は、MRIを用いて髄液の動きを非侵襲的に描出するとともに定性的に評価できるようになった。この方法を用いて髄液流通障害を検討した報告がいくつかみられ、方法としては確立されてきているものと思われる [2, 4, 6, 7, 10, 14, 16]。黒田ら [9] は、Chiari奇形に伴った脊髓空洞症例で、術

Table 1. Maximum flow velocity

Maximum flow velocity (cm/sec.)

	Preop. (mean)(S.D.)	Postop. (mean)(S.D.)	Controls (mean)(S.D.)
Ventral CSF space at FM	1.51 ~ 4.10 (2.25) (0.52)	1.62 ~ 5.30 (2.64) (0.87)	1.85 ~ 4.80 (2.88) (0.65)
Dorsal CSF space at FM	0.75 ~ 1.96 (1.51)*(0.27)	1.45 ~ 2.50 (2.05)*(0.33)	1.70 ~ 2.65 (2.10) (0.34)
Foramen Magendie	0.58 ~ 0.98 (0.72)*(0.12)	0.80 ~ 2.12 (1.28)*(0.37)	0.68 ~ 1.95 (1.30) (0.41)
Ventral CSF space at CSL	1.85 ~ 3.90 (2.77) (0.63)	2.32 ~ 4.05 (2.91) (0.55)	2.00 ~ 4.15 (3.10) (0.62)
Dorsal CSF space at CSL	1.23 ~ 4.24 (2.86) (1.28)	1.90 ~ 5.35 (3.24) (1.20)	1.83 ~ 4.75 (3.02) (0.97)
Syrinx	1.25 ~ 4.50 (2.80) (1.45)	not detected	~

CSF: cerebro-spinal fluid CSL: cervical spine level FM: foramen magnum

*: significant difference ($P < 0.05$)

CSF: cerebro-spinal fluid CSL: cervical spine level FM: foramen magnum

: there was significant ($P < 0.05$) difference, compared with controls.: there was significant ($P < 0.05$) difference, compared with data of postop.

Table 2. % Cardiac cycle

% Cardiac cycle (%)

	Preop. (mean) (S.D.)	Postop. (mean) (S.D.)	Controls (mean) (S.D.)
Ventral CSF space at FM	24 ~ 47 (41) (3.2)	22 ~ 46 (43) (2.8)	20 ~ 43 (39) (2.5)
Dorsal CSF space at FM	21 ~ 38 (30)** (2.4)	33 ~ 50 (44)** (2.3)	38 ~ 52 (44) (2.1)
Foramen Magendie	22 ~ 40 (31)** (2.1)	38 ~ 50 (44)** (2.2)	35 ~ 48 (41) (2.0)
Ventral CSF space at CSL	20 ~ 46 (40) (3.0)	21 ~ 47 (41) (2.6)	25 ~ 46 (40) (2.9)
Dorsal CSF space at CSL	19 ~ 44 (39) (3.1)	20 ~ 47 (40) (2.9)	27 ~ 45 (39) (2.7)
Syrinx	35 ~ 48 (41) (3.5)	not detected	~

CSF: cerebro-spinal fluid CSL: cervical spine level FM: foramen magnum

**: significant difference ($P < 0.01$)

CSF: cerebro-spinal fluid CSL: cervical spine level FM: foramen magnum

: there was significant ($P < 0.01$) difference, compared with controls.: there was significant ($P < 0.01$) difference, compared with data of postop.

前に延長した % cardiac cycleが、術後には短縮したと報告している。Bhadelia [1], Armonda [2] らの報告では、% cardiac cycleは術前に比べて術後に延長し、髄液の最大流速は術前に比べて術後で大きくなると報告しており、我々の今回の結果を支持するものである。

今回の検討では、第4脳室、Magendie孔、大槽部後部、脊髄くも膜下腔間の髄液の流速が、術前コントロール群の値と有意な差がみられた。これらの流速が、術前と比べ後頭蓋窩拡大形成術の術後にコントロール群の値に近づいた。さらに脊髄空洞は消失、臨床症状も著明に改善した。これらのことからMagendie孔から大孔部後部くも膜下腔、脊髄くも膜下腔への髄液の流速に影響を及ぼす髄液流通障害が脊髄空洞の増大に関与していると考えられる。そして第4脳室、Magendie孔、大孔部後部くも膜下腔、脊髄くも膜下腔間における心拍に連動した髄液の流速を正常化させ、髄液流通障害を取り除くことがChiari奇形に伴った脊髄空洞症の根治的治療であることを示唆している (Fig. 3)。

Cine MRIによる術前の検討では、多少なりとも第4脳室、Magendie孔、大孔部後部くも膜下腔、脊髄くも膜下腔間の髄液の動きがみられ、実際に手術中の所見として大槽部のくも膜に癒着のないことが確かめられた。このことから、術前のCine MRIによって大槽部のくも膜下腔の髄液の流速を全く測定できない場合には、大槽部のくも膜下腔に癒着のあることを予測できると考えられた。癒着が存在する場合、髄液流通障害は、下垂した小脳扁桃のみならずくも膜下腔の癒着によってもおこっていると考え、癒着の剥離などの操作を追加することによって髄液流通障害の改善を期待できる [15]。また、術後神経症状が改善しなかったり、脊髄空洞が縮小しないような場合には、不十分な減圧におわっていないか、術後、大槽部のくも膜の癒着の発生していないか、髄液流通障害が正常化しているのかなどの検討をCine MRIによって行うことができる [12, 15, 16, 17]。大孔部の減圧を行っても空洞に改善がみられないからといって、ただちに空洞短絡術に方針をかえるべきではない。不十分な減圧の場合は減圧操作を追加する方法がよいと思われる。空洞短絡術はChiari奇形に伴う空洞症の原因治療と考えにくく、常に脊髄切開と短絡管の閉塞の危険性を伴うからである。

頸髄前部くも膜下腔、頸髄後部くも膜下腔、大孔部前部くも膜下腔の髄液の流速には、術前後において有意な変化はなく、コントロール群と比べても有意差はみられなかったことから、これらの部分の髄液の流通は、脊髄

空洞の発生の成因には大きくは関与しているかどうかは結論できなかった。一方術前、脊髄空洞内の内容液の流速は、同レベルにおける脊髄と比べて明らかに波型、流速ともに違いがみられており、少なくとも内容液そのものの動きをとらえているものと考えられた。術後に、これら脊髄空洞内の内容液の流速が測定できなくなった。この結果から脊髄空洞内の内容液の動きが、脊髄空洞の増大、伸展には関与していると推測できた。このことは、Williams [18] が述べた脊髄空洞の増大機序としての slosh theoryを支持するものであるといえる。

結 語

髄液流通障害を定量的に計測することが、診断、治療効果の判定に重要であると思われた。髄液流通障害の詳細な検討が、脊髄空洞の成因の解明につながると考えられた。

この論文の一部は第14回日本脊椎外科学会（1999年、東京、多摩）において発表した。

この研究の一部は、＜厚生省、精神神経疾患8公5、脊髄空洞症および二分脊椎に伴う脊髄病態および治療に関する研究＞の援助によって行われた。

文 献

1. Armonda RA, Citrin CM, Foley KT, et al: Quantitative cine mode magnetic resonance imaging of Chiari I malformations: an analysis of cerebrospinal fluid dynamics. *Neurosurgery* 35: 214-224, 1994
2. Bhadelia RA, Bogdan AR, Wolpert SM, Lev S, Appingnani BA, Heilman CB: Cerebrospinal fluid waveforms: analysis in patients with Chiari malformation by mean of gated phase-contrast MR imaging velocity measurements. *Radiology* 196: 195-202, 1995
3. du Boulay GH: Pulsatile movements in the CSF pathway. *Br J Radiol* 39: 255-262, 1966
4. Edelman RR, Wedeen VJ, Davis KR, Widder D, Hahn P, Shoukimas G, Brady TJ: Multiple MR imaging: a new method for direct imaging of pulsatile CSF flow. *Radiology* 161: 779-783, 1986

5. Enzemann DR, Pelc NJ: Normal flow patterns of intracranial and spinal cerebrospinal fluid defined with phase-contrast cine MR imaging. *Radiology* 178: 467-474, 1991
6. Feinberg DA, Mark AS: Human brain motion and cerebrospinal fluid circulation demonstrated with MR velocity imaging. *Radiology* 163: 793-799, 1987
7. Greitz D, Wirestam R, Frank A, Nordell B, Thomsen C, Stahlberg F: Pulsatile brain movement and associated hydrodynamics studied by magnetic resonance phase imaging. *Neuroradiology* 34: 370-380, 1992
8. Hakuba A: Syringomyelia, in Kikuchi H, Hakuba A(eds): *Illustrated Techniques in Microneurosurgery*. Tokyo: Igakushoin, 1990, pp 249-256
9. 黒田 敏, 松沢 等, 岩崎喜信, 飛騨一利, 今村博幸, 阿部 弘, 斎藤久寿: Chiari 奇形を合併した脊髄空洞症の髄液循環動態 - cine MRI による検討 -. *脳神経* 46: 59-64, 1994
10. Levy LM, Chiro GD: MR phase imaging and cerebrospinal fluid flow in the head and spine. *Neuroradiology* 32: 399-406, 1990
11. Nishikawa M, Sakamoto H, Hakuba A, Nakanishi N, Inoue Y: Pathogenesis of Chiari malformation: a morphometric study of the posterior cranial fossa. *J Neurosurg* 86: 40-47, 1997
12. 西川 節, 坂本博昭, 北野昌平, 白馬 明, 中西愛彦: Chiari奇形に伴った脊髄空洞症における治療経過と機能予後についての検討. *脳神経* 51: 318-323, 1999
13. Oldfield EH, Muraszko K, Shawker TH, Patronas NJ: Pathophysiology of syringomyelia associated with Chiari I malformation of the cerebellar tonsils. Implications for diagnosis and treatment. *J Neurosurg* 80: 3-15, 1994
14. Quencer RM, Donovan Post MJ, Hinks RS: Cine MR in the evaluation of normal and abnormal CSF flow: intracranial and intraspinal studies. *Neuroradiology* 32: 1993
15. 坂本博昭, 西川 節, 中西愛彦, 白馬 明, 得能永夫: Chiari奇形に伴う脊髄空洞症に対する外科的治療. *脊髄外科* 8: 1-6, 1994
16. 坂本博昭, 西川 節, 中西愛彦, 白馬 明: 成人型Chiari奇形に伴う脊髄空洞症の外科的治療 - 後頭蓋窩拡大形成術を行った症例を中心に -. *脊髄外科* 9: 122-129, 1995
17. Sakamoto H, Nishikawa M, Hakuba A, Yasui T, Kitano S, Nakanishi N, Inoue Y: Expansive suboccipital cranioplasty for the treatment of syringomyelia associated with Chiari malformation. *Acta Neurochir (Wien)* 141: 949-961, 1999
18. Williams B: The distending force in the production of communicating' syringomyelia. *Lancet* 2: 189-193, 1969

Reviewer's comment : 阿部 俊昭 (東京慈恵会医科大学 脳神経外科)

この論文はキアリー奇形 I 型に合併した脊髄空洞症の発生機序のうち、最も重要とされている大孔部での髄液流通障害を、定量的かつ非侵襲に評価している点で重要と思います。

手術により空洞が縮小しない例や、空洞が術後に再拡大した例に対する治療法を決定する上で有用と思います。

但し著者らも述べているように、空洞縮小の条件が大孔部の髄液流通障害の解消であるなら、大孔部減圧術だけで十分であり、著者らが行っている後頭蓋窩全体を拡大させるべきとする根拠が、この論文では述べられていないのが残念と思いました。

Reviewer's comment : 井須 豊彦 (釧路労災病院 脳神経外科)

現在、キアリー奇形に合併した脊髄空洞症に対し、大後頭孔部の髄液流通障害を改善させる大後頭孔部減圧術 (硬膜外層のみの切除を行う大後頭孔部減圧術、硬膜形成術を行う大後頭孔部減圧術、後頭蓋窩拡大形成術) が行われています。

著者等が行っているCine MRIを用いた髄液流通障害の定量的評価法は手術効果判定に非常に有用です。大後頭孔部減圧術では術早期より空洞が縮小しない場合があります。このような症例に対して、本法を行うことにより、髄液流通障害液が正常化したかどうかの判定が可能であり、再手術を含めた治療方針の決定に有用と思われます。