腰仙椎部移行椎の形態と 脊椎インピンジメント症候群 (特に Bertolotti 症候群について)

Lumbosacral Transitional Vertebrae : The Morphology and Bertolotti's Syndrome

兼松 龍^{*1} 花北 順哉^{*1} 高橋 敏行^{*1}
南 学^{*1} 本多 文昭^{*1,2}

Ryo Kanematsu, M.D.^{*1}, Junya Hanakita, M.D., Ph.D.^{*1},
Toshiyuki Takahashi, M.D., Ph.D.^{*1}, Manabu Minami, M.D., Ph.D.^{*1},
Fumiaki Honda, M.D., Ph.D.^{*1,2}

Key words :
Bertolotti's syndrome
lumbosacral transitional
vertebrae
lumbarization
sacralization

Spinal Surgery 34 (1) 32-38, 2020

はじめに

本稿では、腰仙椎移行部の解剖学的形態異常につき記載し、次いで同部における移行椎に伴う腰臀部痛もしくは神経根症を呈するものを Bertolotti 症候群と定義し、この症候群の臨床像、検査所見、治療法につき記載する。

腰仙椎移行部の形態異常について

腰仙椎部移行椎 (lumbosacral transitional vertebrae : LSTV) は脊椎分節異常の 1 つと考えられ、腰椎の仙椎化 (sacralization) や仙椎の腰椎化 (lumbarization) などを含む¹⁾。これらの形態学的な多様性は、L5 横突起の肥大から仙骨翼と L5 横突起間の完全な癒合、偽関節の形成など多岐にわたり、胎生期の仙骨への荷重負荷が影響を与えていると考えられている²⁾。Mahato²⁾は、332 例の解剖屍体標本の仙骨に対し三次元的パラメータを設定し、腰椎化仙椎もしくは仙椎化腰椎は正常の仙骨と比較し、その各パラメータ値が異なると報告している。つまり、不十分な S1 椎体をもった小さな仙骨は荷重負荷に耐えるために L5 椎体を取り込み、大きな仙骨は S1 を腰椎へ放出すると考えられている²⁾。胎生学的研究において、ヒトと高等動物であるサルの研究をした結果から、霊類は進化すると腰椎は短縮し、腰椎が仙椎に変化すると

いわれている³⁾。遺伝子学的には、体節にかかわる構造の適切な数量と配置について決定的な役割をもつ HOX 遺伝子が、これらの力学的負荷によって、脊椎分節の過程に何らかの影響を与えていると推察されている¹⁾。また、LSTV の形態学的特徴については、L5 横突起や仙骨翼などの後方要素の形態に基づいた分類 (Fig. 1)³⁾や LSTV 直下の椎間板の形態に基づいた前方要素の分類⁴⁻⁶⁾ (Fig. 2)、両者を合わせた分類などがある^{7,8)}。

LSTV では腰仙椎の分節異常と神経根高位の変化に関しても議論があり、それは腰仙骨神経叢を構成する神経根の多様性によるところである^{9,10)}。Jhering¹¹⁾は腰仙骨神経叢を構成する脊髄神経のうち、下肢の前面および後面の両方に分布する神経を分岐神経 (furcal nerve) と記載した。この神経は従来から、腰仙骨神経叢の頭尾側へのずれを示す指標と考えられており、通常は L4 神経根に相当し、大腿神経、閉鎖神経、腰仙骨神経幹に 3 分枝する。その起始分節の高さや各分枝の太さにはかなりの個体差がみられ、分岐神経の起始部のずれと椎骨の分節異常との関連が報告されている^{9,10)}。McCulloch ら¹²⁾は、腰仙椎に分節異常がある場合、第 5 腰神経根は最下位の可動髄節から出る、つまり、正常の胎生学において、神経と骨の分節は並行して発育するので、筋の髄節支配は

^{*1} 藤枝平成記念病院脊髄脊椎疾患治療センター / Department of Spinal Disorders Center, Fujieda Heisei Memorial Hospital
連絡先: 〒426-8662 藤枝市水上 123-1 藤枝平成記念病院脊髄脊椎疾患治療センター 兼松 龍 [Address reprint requests to :
Ryo Kanematsu, M.D., Department of Spinal Disorders Center, Fujieda Heisei Memorial Hospital, Mizukami 123-1, Fujieda-shi,
Shizuoka 426-8662, Japan]

^{*2} 群馬大学脳神経外科 / Department of Neurosurgery, Gunma University Graduate School of Medicine

骨性異常とよく適合し、仙椎化腰椎では神経叢は頭側に、腰椎化仙椎では尾側に移動すると述べている。Changら¹³⁾は、腰椎椎間板ヘルニア手術例の運動麻痺と感覚障害の範囲をもとに、腰椎化仙椎でのL6神経根は正常のS1神経根の機能よりL5神経根に近いことを報告している。

LSTV と腰臀部痛

LSTVの保有率は、診断方法によって異なるが、なんらかの腰臀部痛もしくは下肢痛を呈し画像検査を施行された8,280人で10.6%¹⁴⁾、中国健康人ボランティア5,860人で15.8%¹⁵⁾など10~15%程度の保有率の報告が多い¹⁾。標準的な前後方向の腰椎X線でのLSTVの有無は76~84%の感度といわれ、Ferguson view (20~30度のタウン撮影)が推奨される¹⁶⁾。必ずしもLSTVが症候性になるとは考えられないが、これまでにLSTVを有するヒトにおいて、腰痛や臀部痛が生じた場合に横突起と仙骨翼で形成された偽関節部位にPET/CTやSPECT検査で集積を認めたとする報告^{17,18)}や、その偽関節部を高周波熱凝固療法(radiofrequency)により治療した例の報告もある¹⁹⁾。Liら²⁰⁾は、治療アルゴリズム(Fig. 3)で示すように、LSTVによる腰痛、臀部痛のみを呈するBertolotti症候群の診断には、詳細な臨床経過、放射線学的な評価、偽関節への診断的ブロックが重要であると述べている。

LSTV と L5 神経根のインピンジメント

LSTVにおけるL5横突起と仙骨翼で形成された偽関節は、骨増生や滑膜様組織を形成し、偽関節に伴うL5神経根の椎間孔外での狭窄例が報告されている^{21,22)}。当院での代表症例をFig. 4, 5に示した。Nathanら²³⁾は、L5横突起やL5椎体から仙骨翼前面にかけて腸腰靱帯(lumbosacral ligament: LSL)が付着しており、LSL, L5横突起、仙骨翼、L5椎体やL5/S1椎間板で囲まれた空間を“lumbosacral tunnel”と命名し、同部でL5神経根の絞扼が起こる可能性を示唆している。つまり、このトンネルの内側には、L5およびS1の椎体やL5/S1椎間板が位置し、腹側にはLSL、遠位には仙骨翼が位置する(Fig. 6)。さらに、偽関節がある場合は背側および外側からの構造物となり、限られた空間を走行するL5神経根は正常脊椎と比べ、神経障害を発症しやすいと考えられる。ただ、移行椎では偽関節と腰仙靱帯の走行は重複している。Aiharaら²⁴⁾は、解剖屍体標本で、正常の腰仙椎に比べ、移行椎では腸腰靱帯は退縮もしくは筋膜様に変化していたと報告した。われわれの渉猟する限り、移行椎におけ

Fig. 1²⁰⁾

Castellvi's classification. Type I includes unilateral (I a) or bilateral (I b) dysplastic transverse processes, measuring at least 19 mm in width (craniocaudal dimension). Type II exhibits incomplete unilateral (II a) or bilateral (II b) lumbarization/sacralization with an enlarged transverse process that has a diarthrodial joint between itself and the sacrum. Type III LSTV describes unilateral (III a) or bilateral (III b) lumbarization/sacralization with complete osseous fusion of the transverse process(es) to the sacrum. Type IV involves a unilateral type II transition with a type III on the contralateral side.

る腰仙靱帯についての文献は認めなかった。腸腰靱帯と同様に、腰椎と骨盤の運動性に寄与すると考えられる腰仙靱帯も、移行椎では退縮している可能性がある。

Bertolotti 症候群の臨床症状について

腰痛および坐骨神経痛とLSTVの関係性は、1917年に

Fig. 2^{6~8)}

The classification of disc beneath a LSTV. Type 1 disc has the slender biconvex appearance of the sacral disc, it is thicker centrally than peripherally, and can be described as a cryptic or synostotic disc. Type 2 disc is one with a rectangular shape, viewed from the side, but is of short height and is surrounded by a thin osseous capsule or is of a slightly greater height, but without a persisting bony capsule. Type 3 disc is of a height and shape similar to a conventional lumbar disc.

Fig. 3²⁰⁾

Diagnostic algorithm to identify the specific treatment modality for patients with Bertolotti's syndrome. First, conservative therapies such as physical therapy and medication need to be incorporated. If patients are not satisfactorily relieved of their symptoms, a diagnostic trigger point anesthetic block is taken into consideration. Furthermore, radiofrequency and operations may be one of the choices to ensure long-term improvement.

Fig. 4

The fifth nerve root is compressed by nearthrosis with new bone formation (arrow). Constructive Interference in Steady State on MRI (a), coronal (b) and axial (d) CT, axial T2 MRI (c) and 3D-bone CT (e).

Fig. 5

The fifth nerve root is compressed by nearthrosis with synovial-like tissue (arrow). Constructive Interference in Steady State on MRI (a), coronal (b) and axial (d) CT, axial T2 MRI (c).

Bertolotti により記載され²⁵⁾, 1919 年には, Richard²⁶⁾ が L5 横突起の先天奇形に関連した腰仙椎移行部の疼痛を報告した. 日本では, 1921 年に田中²⁷⁾ が L5 横突起の發育異常による腰痛, 坐骨神経痛を呈するものをリチャード氏病として初めて記載した. 1922 年には, Bertolotti が

LSTV の放射線学的な特徴に基づき, “*syndromes lombo-ischialgiques*” (つまり, lumbar-sciatic syndrome) として報告した²⁸⁾. その後, 腰仙椎移行部における神経根圧迫に関する研究は長らく途絶えていたが, 1984 年には, Castellvi ら²⁹⁾ が横突起と仙骨翼の関係性に基づいた腰仙

Fig. 6³⁸⁾

Schematic drawing of extraforaminal root compression of the fifth lumbar spinal nerve at the lumbosacral junction. ★ : location of L5 nerve root, L4NR : L4 nerve root, L5NR : L5 nerve root, LSL : lumbosacral ligament, P : pedicle, SA : sacral ala, S1NR : S1 nerve root, TP : transverse process. The L5 nerve root is compressed by the transverse process from the dorsocranial direction (arrow 1), by the sacral ala from the dorsocaudal direction (arrow 2), and by osteophytes of the vertebral body from the ventral direction (arrow 3). The right pars interarticularis, transverse process, and sacral ala are also partially resected. The L5 nerve root is compressed from the dorsal direction by the superior articular process (arrow 4) and lumbosacral ligament (arrow 5) and from the lateral direction by osteophytes of the articulation between the transverse process and sacral ala (arrow 6).

部移行椎の分類を報告した。また、同年に Wiltse ら³⁰⁾が変性側弯や分離すべりに伴い、L5 横突起と仙骨翼により L5 神経根が圧迫されるものを“far-out syndrome”と報告し、それ以後、L5 椎弓根外側部以遠で圧迫を受けるものとして用いられるようになった。

Bertolotti 症候群の画像所見について

椎間孔外病変の検索には、神経根の走行に合わせたスライスの冠状断で行う constructive interference in steady state (CISS) 画像が有用である。これにより、椎間孔外までほぼ連続した神経根の情報を得ることができる (Fig. 4 A, 5 A)。また、MRI の矢状断・軸位断および CT scan の 3 方向の画像を参考にしながら、圧迫因子とその範囲を診断する。神経根造影・ブロックは L5 神経根症か否かを判断することは可能であるが、画像所見としては MRI と同様に偽陽性があり得るために、必要性については意見が分かるところであり³¹⁾、偽関節を呈するような移行椎の場合、ブロック針の神経根へのアプローチも難しいことがしばしばある。自験例では、2008～2018 年の間に L5/S1 椎間孔外狭窄症 (分離症は除く) に対し、除圧術もしくは固定術を行った患者 65 例の中で、LSTV を 26 例 (40%) に認めた。画像上の狭窄因子については、LSTV が狭窄に関係ない群 (A 群) 11 例、LSTV

による骨性狭窄が狭窄に関与した群 (B 群) 6 例、LSTV による軟部組織 (滑膜様組織) が狭窄に関与した群 (C 群) 9 例の 3 群に分類することができた (Fig. 7)。LSTV を有する L5/S1 椎間孔外狭窄において、偽関節が L5 神経根の圧迫に関与しているものは半数以上に認めたことから、LSTV を有する場合は外側部の偽関節による圧迫についても十分考慮する必要があると考えている。

Bertolotti 症候群に対する治療法

Bertolotti 症候群に対する治療法については、標準的な方法は確立されていないが、内服治療や理学療法に抵抗性の場合はブロックや手術加療が考慮される。腰臀部痛のみを呈する場合、偽関節に対しブロックや高周波熱凝固療法、パルス高周波法 (pulsed radiofrequency) が考慮される^{19,32)}。神経根症症状を呈する場合も神経根ブロックやパルス高周波法が選択肢となる³³⁾。手術加療については、Abe ら³⁴⁾、Kikuchi ら³⁵⁾が報告した前方アプローチによる横突起切除による除圧術や、内視鏡や micro-endoscopic discectomy (MED) システムを用いた後方からのアプローチも報告されている^{20,36)}。当院では、Wiltse らの報告した傍脊椎アプローチによる椎間孔拡大術が大半を占め、その他、除圧固定術、L5/S1 の片側固定術を併用した除圧術、内視鏡による椎間孔形成術

Fig. 7

Classification based on the presence of neural compression by new bone formation or synovial-like tissue due to nearthrosis below a LSTV. Comparison of three groups classified based on the radiological findings of nearthrosis. Here, the schema associated with each group is demonstrated. Group A : extraforaminal stenosis compressed by disc bulging, which has no relation to nearthrosis. Group B : fifth nerve root compressed by nearthrosis with new bone formation, Group C : fifth nerve root compressed by nearthrosis with synovial-like tissue.

が施行されてきた。Wiltse らの報告した傍脊椎アプローチでは、神経根の背側成分を十分に除圧したうえで、神経根の前方に位置する椎体の骨棘や椎間板の膨隆を切除するかどうかを術中の神経根の可動性で判断することが重要と考えている。固定術の併用については、Santavirta らは術式間で Oswestry Pain Scale の改善度に有意差はなく、いずれも良好な成績であったと報告している³⁷⁾。しかしながら、Li ら²⁰⁾は MRI にて最尾側腰椎と仙骨間の椎間板に変性があった場合には固定術を推奨している。

おわりに

腰仙部移行椎の形態に関する解説と Bertolotti 症候群の臨床的問題点・治療法について概説を行った。本邦では Bertolotti 症候群やリチャード氏病という用語が混在しているが、本稿が Bertolotti 症候群の理解を深め、臨床で生かされれば幸いである。

著者全員は日本脳神経外科学会への COI の自己申告を完了しています。本論文の発表に関して開示すべき COI はありません。

文 献

- 1) Jancuska JM, Spivak JM, Bendo JA : A review of symptomatic lumbosacral transitional vertebrae : Bertolotti's syndrome. *Int J Spine Surg* 9 : 42, 2015
- 2) Mahato NK : Lumbosacral transitional vertebrae : variations in low back structure, biomechanics, and stress patterns. *J Chiropr Med* 11 : 134-135, 2012
- 3) Gillespie HW : The significance of congenital lumbo-sacral abnormalities. *Br J Radiol* 22 : 270-275, 1949
- 4) O'Driscoll CM, Irwin A, Saifuddin A : Variations in morphology of the lumbosacral junction on sagittal MRI : correlation with plain radiography. *Skeletal Radiol* 25 : 225-230, 1996
- 5) 神中正一 : 脊椎畸形. 日整会誌 4 : 1-39, 1929
- 6) Wigh RE, Anthony HF Jr : Transitional lumbosacral discs. Probability of herniation. *Spine* 6 : 168-171, 1981
- 7) 角田信明 : 腰仙移行椎の形態的特徴と上位椎間板への影響. 整外と災外 36 : 809-812, 1988
- 8) 角田信明 : 腰仙移行椎の形態的特徴とその上位椎間への影響. 中部整災誌 33 : 197-200, 1990
- 9) 工藤 修, 原田征行, 近江洋一, 他 : 腰仙部根症状の多様性に関する解剖学的考察. 臨整外 22 : 369-378, 1987
- 10) 鈴木信治 : 腰仙椎分節異常と神経根高位に関する解剖学的研究. 日整会誌 61 : 1379-1387, 1987
- 11) Jhering H : Ueber den Begriff der Segmente bei Wirbeltieren. *Zentralbl Med Wissensch* 9 : 1, 1878
- 12) McCulloch JA, Waddell G : Variation of the lumbosacral myotomes with bony segmental anomalies. *J Bone Joint Surg Br* 62 : 475-480, 1980
- 13) Chang HS, Nakagawa H : Altered function of lumbar nerve roots in patients with transitional lumbosacral vertebrae. *Spine* 29 : 1632-1635, 2004
- 14) Paik NC, Lim CS, Jang HS : Numeric and morphological verification of lumbosacral segments in 8280 consecutive patients. *Spine* 38 : E573-E578, 2013
- 15) Tang M, Yang XF, Yang SW, et al : Lumbosacral transitional vertebra in a population-based study of 5860 individuals : prevalence and relationship to low back pain. *Eur J Radiol* 83 : 1679-1682, 2014
- 16) Farshad-Amacker NA, Lurie B, Herzog RJ, et al : Interreader and intermodality reliability of standard anteroposterior radiograph and magnetic resonance imaging in detection and classification of lumbosacral transitional vertebra. *Spine J* 14 : 1470-1475, 2014
- 17) Usmani S, Ahmed N, Marafi F, et al : Bertolotti syndrome dem-

- onstrated on 18F-NaF PET/CT. *Clin Nucl Med* 42 : 480-482, 2017
- 18) Malham GM, Limb RJ, Claydon MH, et al : Anterior pseudoarthrectomy for symptomatic Bertolotti's syndrome. *J Clin Neurosci* 20 : 1762-1766, 2013
- 19) Burnham R : Radiofrequency sensory ablation as a treatment for symptomatic unilateral lumbosacral junction pseudarthrosis (Bertolotti's syndrome) : a case report. *Pain Med* 11 : 853-855, 2010
- 20) Li Y, Lubelski D, Abdullah KG, et al : Minimally invasive tubular resection of the anomalous transverse process in patients with Bertolotti's syndrome : presented at the 2013 Joint Spine Section Meeting : clinical article. *J Neurosurg Spine* 20 : 283-290, 2014
- 21) Porter NA, Lalam RK, Tins BJ, et al : Prevalence of extraforaminal nerve root compression below lumbosacral transitional vertebrae. *Skeletal Radiol* 43 : 55-60, 2014
- 22) Weber J, Ernestus RI : Transitional lumbosacral segment with unilateral transverse process anomaly (Castellvi type 2A) resulting in extraforaminal impingement of the spinal nerve : a pathoanatomical study of four specimens and report of two clinical cases. *Neurosurg Rev* 34 : 143-150, 2010
- 23) Nathan H, Weizenbluth M, Halperin N : The lumbosacral ligament (LSL), with special emphasis on the "lumbosacral tunnel" and the entrapment of the 5th lumbar nerve. *Int Orthop* 6 : 197-202, 1982
- 24) Aihara T, Takahashi K, Ogasawara A, et al : Intervertebral disc degeneration associated with lumbosacral transitional vertebrae : a clinical and anatomical study. *J Bone Joint Surg Br* 87 : 687-691, 2005
- 25) Bertolotti M : Contributo alla conoscenza dei vizi di differenziazione regionale del rachide con speciale riguardo all'assimilazione sacrale della v. lombare. *Radiol Med* 4 : 113-144, 1917
- 26) Richard AJ : Pain in the lumbosacral region associated with congenital malformation of the transverse process of the fifth lumbar vertebra. *AJR* 6 : 434-439, 1919
- 27) 田中義雄 : 第五腰椎横突起の發育異常に關する臨牀的意義. 醫事新聞 1075, 1921
- 28) Bertolotti M : Les syndromes lombo-ischialgiques d'origine vertebrale. Leur entité morphologique et clinique. *Rev Neurol (Paris)* 38 : 1112-1125, 1922
- 29) Castellvi AE, Goldstein LA, Chan DP : Lumbosacral transitional vertebrae and their relationship with lumbar extradural defects. *Spine* 9 : 493-495, 1984
- 30) Wiltse LL, Guyer RD, Spencer CW, et al : Alar transverse process impingement of the L5 spinal nerve : the far-out syndrome. *Spine* 9 : 31-41, 1984
- 31) 中井 修 : 腰椎椎間孔狭窄の病態諸相. 脊椎脊髓 23 : 494-502, 2010
- 32) Kanematsu R, Hanakita J, Takahashi T, et al : Pulsed radiofrequency treatment for bertolotti's syndrome presenting with low back pain : report of four cases. *Pain Pract*, 2020 [Epub ahead of print]
- 33) Manchikanti L, Abdi S, Atluri S, et al : An update of comprehensive evidence-based guidelines for interventional techniques in chronic spinal pain. Part II : guidance and recommendations. *Pain Physician* 16 (2 Suppl) : S49-283, 2013
- 34) Abe E, Sato K, Shimada Y, et al : Anterior decompression of foraminal stenosis below a lumbosacral transitional vertebra. A case report. *Spine* 22 : 823-826, 1997
- 35) Kikuchi K, Abe E, Miyakoshi N, et al : Anterior decompression for far-out syndrome below a transitional vertebra : a report of two cases. *Spine J* 3 : e21-25, 2013
- 36) Shibayama M, Ito F, Miura Y, et al : Unsuspected reason for sciatica in Bertolotti's syndrome. *J Bone Joint Surg Br* 93 : 705-707, 2011
- 37) Santavirta S, Tallroth K, Ylinen P, et al : Surgical treatment of Bertolotti's syndrome. Follow-up of 16 patients. *Arch Orthop Trauma Surg* 112 : 82-87, 1993
- 38) 倉石慶太, 花北順哉, 高橋敏行, 他 : L5/S1 椎間孔外狭窄についての検討. 脊髓外科 27 : 40-44, 2013