

氏 名	さいとう ゆみこ 齋藤 裕美子
学位の種類	博士(医学)
学位授与年月日	2020年3月25日
学位授与の条件	学位規則第4条第1項
研究科専攻	東北大学大学院医学系研究科(博士課程) 医科学専攻
学位論文題目	特発性正常圧水頭症における Blake's pouch cyst 様所見の検討
論文審査委員	主査 教授 鈴木 匡子 教授 新妻 邦泰 教授 福土 審

論文内容要旨

特発性正常圧水頭症 (idiopathic normal pressure hydrocephalus: INPH) は、高齢者において進行性の歩行・認知機能・排尿障害を引き起こす疾患であり、シャント手術により治療が可能である。Blake's pouch cyst (BPC) は、胎生期における Magendie 孔の開口不全により遺残した後頭蓋窩嚢胞である。BPC は無症状の場合もあるが、第四脳室出口における髄液流出障害から水頭症をきたす場合がある。発生機序に基づいて、従来 BPC に伴う水頭症は先天性・非交通性水頭症と考えられてきた。実際、既報告の大半は乳幼児期発症例に関するものであり、治療においても内視鏡下第三脳室底開窓術 (endoscopic third ventriculostomy: ETV) の有効性が示されている。一方、近年 INPH 様の経過をたどる高齢発症例についても報告されている。日常臨床においても通常の disproportionately enlarged subarachnoid-space hydrocephalus (DESH) 所見に加えて BPC 様の画像所見を伴う INPH 患者にしばしば遭遇する。このような場合、高齢まで無症候であることを鑑みると非交通性水頭症とは考え難く、通常の INPH と同様に交通性機序が関与していると推測される。したがって、タップテストおよびシャント手術が安全かつ有効であると予想されるが、この点について過去に検討はなされていない。今回我々は、BPC 様所見の有無によって INPH 患者のタップテストおよびシャント手術への反応性を含む臨床的・画像的特徴に違いがあるかどうかについて検討した。はじめに、46 名の INPH 患者と 247 名の健常高齢者において BPC 様所見の MRI 有見率を調べたところ、それぞれ 17.4% と 2.4% であり、両群間で約 7.2 倍の差が認められた。次に、INPH 患者における BPC 様所見の有無による臨床的特徴の違いについて検討したところ、BPC 様所見を有する群は若年発症かつシルビウス裂開大が軽度の傾向を示したものの、タップテストやシャント手術に対する反応性を含むその他の臨床的特徴は BPC 様所見の有無によらず同等であった。以上から、INPH の中には BPC 様所見を伴う例が一部に存在し、通常の INPH と同様に交通性機序が関与しシャント術が有用であること、同所見が先天性要因として INPH の発症に関わっている可能性が示唆された。本研究の結果は、INPH の病態解明の一助となり、INPH に対する診断および治療法の拡充に役立つものと期待される。

審 査 結 果 の 要 旨

博士論文題目特発性正常圧水頭症における Blake's pouch cyst 様所見の検討.....

所属専攻・分野名医科学専攻高次機能障害学分野.....

学籍番号 B6MD5067 氏名 齋藤 裕美子.....

特発性正常圧水頭症（idiopathic normal pressure hydrocephalus: INPH）は、高齢者において進行性の歩行・認知機能・排尿障害を引き起こす疾患であり、シャント手術により治療が可能である。Blake's pouch cyst（BPC）は、胎生期における Magendie 孔の開口不全により遺残した後頭蓋窩嚢胞である。BPC は無症状の場合もあるが、第四脳室出口における髄液流出障害から水頭症をきたす場合がある。発生機序に基づいて、従来 BPC に伴う水頭症は先天性・非交通性水頭症と考えられてきた。実際、既報告の大半は乳幼児期発症例に関するものであり、治療においても内視鏡下第三脳室底開窓術（endoscopic third ventriculostomy: ETV）の有効性が示されている。一方、近年 INPH 様の経過をたどる高齢発症例についても報告されている。日常臨床においても通常の disproportionately enlarged subarachnoid-space hydrocephalus (DESH) 所見に加えて BPC 様の画像所見を伴う INPH 患者にしばしば遭遇する。このような場合、高齢まで無症候であることを鑑みると非交通性水頭症とは考え難く、通常の INPH と同様に交通性機序が関与していると推測される。したがって、タップテストおよびシャント手術が安全かつ有効であると予想されるが、この点について過去に検討はなされていない。今回我々は、BPC 様所見の有無によって INPH 患者のタップテストおよびシャント手術への反応性を含む臨床的・画像的特徴に違いがあるかどうかについて検討した。はじめに、46 名の INPH 患者と 247 名の健常高齢者において BPC 様所見の MRI 有所見率を調べたところ、それぞれ 17.4%と 2.4%であり、両群間で約 7.2 倍の差が認められた。次に、INPH 患者における BPC 様所見の有無による臨床的特徴の違いについて検討したところ、BPC 様所見を有する群は若年発症かつシルビウス裂開大が軽度の傾向を示したものの、タップテストやシャント手術に対する反応性を含むその他の臨床的特徴は BPC 様所見の有無によらず同等であった。以上から、INPH の中には BPC 様所見を伴う例が一部に存在し、通常の INPH と同様にシャント術が有用であること、同所見が先天性要因として INPH の発症に関わっている可能性があることが示唆された。

本研究で得られた知見は、INPH の病態解明の一助となり、INPH に対する診断および治療法の拡充に役立つものと期待される。

よって、本論文は博士（医学）の学位論文として合格と認める。