

方法

研究 1. 血管解剖の解析

1984年4月から2010年12月までに、東京大学脳神経外科学教室で入院治療し、血管造影で確定診断した、脊髄動静脈奇形 連続45例を対象とした。内訳は、硬膜動静脈瘻31例・脊髄辺縁部動静脈瘻4例・髄内動静脈奇形10例である。分類ごとに、血管造影、手術記載、手術ビデオ、病理所見を用いて、血管構造（栄養動脈・動静脈シャント・導出静脈）の特長を調べた。このうち、硬膜動静脈瘻の直達手術26例の内17症例では、栄養血管と導出血管の一部を採取し、弾性線維染色（Elastica van Gieson 染色）で血管壁の性状と血管径を調べた。さらに、手術治療を行った37例について、術前および術中に動静脈シャント部位の特定が困難であった症例の頻度と特長を調べた。

研究 2. 3次元コンピュータ画像の臨床応用

2009年4月から2010年12月までに、東京大学脳神経外科学教室で入院治療し、血管造影で確定診断した、脊髄動静脈奇形 連続13例を対象とした。内訳は、硬膜動静脈瘻8例・脊髄辺縁部動静脈瘻3例、髄内動静脈奇形2例である。これらの13例について、患者の実データから、回転血管造影と脊髄造影CTを合成した3次元コンピュータ画像（3DCG）の作成を試みた。次に、作成した3DCGが実際の手術所見と一致するかどうかを検証した。まず、10例（11部位）の手術例において、術前に、血管造影検査を用いて、血管内治療専門医が動静脈シャントの位置を予測した。さらに、3DCGを用いて、筆頭研究者が動静脈シャントの位置を予測し、実際の手術所見と一致するかどうか調べ、Fisher 統計検定で比較した。このうち、直達手術8症例では、栄養血管と導出血管の一部を採取し、弾性線維染色（Elastica van Gieson 染色）で血管壁の性状と血管径を調べ、動脈と静脈の鑑別を行った。さらに、3DCGが手術に与える影響を検証した。1984年4月から2010年12月までに、東京大学脳神経外科学教室で治療した、硬膜動静脈瘻の直達手術26例中、頭蓋頸椎移行部症例2例を除く24例を対象とし、従来の血管造影を元に手術を行った19例と、3DCGを元に直達手術を行った5例（6部位）について、単一椎弓切除に影響を与えた因子について Fisher 正確確率検定を行った。 P 値 <0.05 を統計学有意とした。

結果

研究 1

硬膜動静脈瘻 31 例において、大部分の症例で、中下位胸椎の肋間動脈や腰部の腰動脈から分岐する根動脈の硬膜枝を栄養動脈とし、神経根硬膜部分の動静脈シャントを経て、根髄静脈・脊髓静脈へと導出する構造をとっていた。動静脈シャントは、主に後根近くの硬膜内部分に存在した。手術で遮断すべき根髄静脈の硬膜貫通部については、12 例 (39%) において、術前、術中の特定が困難であった。内訳は、栄養動脈との脊髓レベルが一致しなかった症例 8 例、前根部分に存在した症例 4 例である。また、根髄静脈と脊髓静脈の構造が、頸部、中位胸椎部、下位胸椎部、腰椎部、仙椎部において著しく異なっていた。硬膜動静脈瘻の血管病理所見は、栄養血管は内径 $0.57 \pm 0.48\text{mm}$ で、壁の全周に筋層と弾性線維を認め動脈構造であった。導出血管は内径 $1.8 \pm 0.80\text{mm}$ で、壁の筋層は明らかでなく弾性線維が不連続で静脈の構造であった。導出血管は、著しい血管拡張、内膜肥厚や一部の内膜菲薄化などの、動脈血流入による、さまざまな修飾を受けていた。

脊髓辺縁部動静脈瘻 4 例においては、栄養動脈は 1-2 本で、頸椎部 2 例は前脊髓動脈、下位胸椎部 2 例は後脊髓動脈であった。頸部 1 例は根髄静脈へと、頸部 1 例は前脊髓静脈へと、下位胸椎部 2 例は後脊髓静脈へと直接シャントして導出していた。4 例いずれも、栄養血管、導出血管と脊髓との位置関係が不明瞭であったため、動静脈シャント部位の特定が困難であった。

髄内動静脈奇形 10 例においては、栄養動脈は大部分の症例 (9 例 90%) で 2-3 本で、全例が前脊髓動脈、半数は後脊髓動脈も関与した。胸腰部の全例 Adamkiewicz 動脈が栄養していた。ナイダス (動静脈シャント) は頸部 2 例、上位胸椎部 1 例、下位胸椎部と円錐部 7 例であった。導出血管は、前脊髓静脈が主の症例が 7 例、後脊髓静脈が主の症例が 3 例であった。4 例 (40%) においては、一部の栄養血管のヘアピンループが明らかでなく脊髓との位置関係の特定が困難であった。

研究 2

13 例の全症例で、回転血管造影と脊髓造影 CT を合成した 3DCG を作成し得た。10 例 (11 部位) の手術例において、術前に、動静脈シャントの位置を正確に予想し得たのは、従来の血管造影では、4 部位 (36%) で、3DCG では 9 部位 (91%) であった。このデータの差は統計的に有意であった ($P=0.024$, Fisher 正確確率検定)。また、血管病理所見は、3DCG で予測した栄養血管は、壁の全周に筋層と弾性線維を認め動脈構造であり、導出血管は、壁の筋層は明らかでなく弾性線維が不連続で静脈の構造であり、いずれも硬膜動静脈瘻もしくは脊髓辺縁部動静脈瘻の所見に合致した。さらに、硬膜動静脈瘻の直達手術 24 例において、単一椎弓切除に影響を与えた因子は、3D コンピュータ画像による診断であった ($P=0.001$, Fisher 正確確率検定)。

考察

この研究で、われわれは次の2点を示した。

1点は、脊髄動静脈奇形の血管解剖を、周囲神経組織との関係を元に解析し、栄養動脈の鑑別診断、動静脈シャント部位、導出血管の鑑別診断を行い、動静脈シャント部位の特定が困難であった症例の頻度と特長を明らかにした点である。先行研究と比較し、特に、硬膜動静脈瘻の硬膜貫通部（動静脈シャント）と周囲構造との関係の多様性を記述した点が、新しい点と考えられる。

2点は、患者の実データから脊髄動静脈奇形の3DCGを作成し得たこと、さらに、3DCGは、従来の血管造影検査よりも、動静脈シャントの位置を正しく予測し、直達手術症例の椎弓切除を減らすことができることを示した点である。われわれの知りうる限り、脊髄動静脈奇形の3DCGは先行研究が無く、本研究が初めての報告である。

本疾患の血管解剖の診断が難しい理由は、脊髄血管構造が極めて小さいことが挙げられる。さらに、正常な脊髄の血管解剖が部位により大きく異なっていることや、血管径が動静脈シャントの血流により修飾を受けることから、脊髄動静脈奇形の血管構造が、極めて多様で複雑であるためと考えられる。これらの症例は、栄養血管の脊椎レベルは分かるけれども、動静脈シャントや栄養血管と骨・脊髄・硬膜との詳細な関係が不明瞭であった。

3DCGが従来の検査よりも脊髄動静脈奇形の診断に優れていた理由は3つ挙げられる。第1に、回転血管造影と脊髄造影CTを融合することにより、脊髄の血管系と脊髄・硬膜・骨とを一度に描出できた点である。この結果、硬膜動静脈瘻の異常血管と硬膜との位置関係の特定、および、脊髄辺縁部動静脈瘻、髄内動静脈奇形の異常血管と脊髄との位置関係の特定に威力を発揮した。2つ目に、3次元化により異常血管と硬膜・脊髄の画像を、あらゆる方面から観察できるようになった点である。立体的な融合画像を、任意の方向に回転、拡大して観察できるため、血管解剖の解釈が容易で確実になった。3つ目に、硬膜・脊髄・骨などの任意の情報について、透明化や削除などの操作を行える点である。この結果、多様で複雑な本疾患の鑑別診断と、手術アプローチ、骨削除・硬膜切開の範囲の決定など、術前シミュレーションに有用であった。

3DCGの再現性については、ソフトウェア上で、回転血管造影と脊髄造影CTのボクセルデータのCT値を数値で調整可能であり、また、画像融合はボクセルデータの濃度分布を元に、正規化相互情報療法で融合しているため、トレーニングは必要なものの、3DCG作成者が異なっても同じ画像を再現可能と思われる。

一方で、この3DCGには、複数の椎体の融合の精度の問題や、従来の血管造影と比べて血流の動的情報がないなどの限界もある。それぞれ、脊椎の前後屈や回旋の動きを最小限にする工夫や、血流の情報解析、血管の病理学的検証などが必要と思われる。