

脳室帽状腱膜下シャント術が奏功した未熟児水頭症の1例

飛弾美紗都¹⁾ 大園 伊織²⁾ 松田 真伍²⁾
栞原 政志²⁾ 日高 敏和²⁾ 井川 房夫²⁾

概 要：未熟児，特に出生体重1,000g未満の超低出生体重児では脳室内出血が生じることが多く，出血後水頭症をきたすことがある．最も一般的な治療法は脳室腹腔シャント術であるが，患児の体重や全身状態などによってはすぐに施行することが困難であり，代替手段を必要とすることが多い．

この度，代替手段として本邦でも実施例の少ない脳室帽状腱膜下シャント術が奏功した未熟児水頭症の1例を経験したため，若干の文献的考察を加えて報告する．症例は在胎23週4日，出生時体重518gの超低出生体重児．日齢1の超音波検査で脳室内出血を認めた．その後脳室の経時的拡大を認め指摘された水頭症に対して，体重が1,500gに達した日齢72に脳室帽状腱膜下シャント術を施行した．日齢111のMRIでは帽状腱膜下スペースに髄液貯留を認め，髄液漏もなく経過した．体重が3,000gに達した日齢124に脳室腹腔シャント術を施行した．その後も合併症なく経過し，日齢198に自宅退院した．

索引用語：早産低出生体重児，脳室内出血，未熟児水頭症，脳室帽状腱膜下シャント術

Ventriculosubgaleal shunt in a hydrocephalus after intraventricular hemorrhage in a premature infantMisato HIDA¹⁾ Iori OZONO²⁾ Shingo MATSUDA²⁾
Masashi KUWABARA²⁾ Toshikazu HIDAKA²⁾ and Fusao IKAWA²⁾

Key words : Preterm low birth weight infant, Intraventricular hemorrhage, Ventriculosubgaleal shunt, hydrocephalus in premature infants

【はじめに】

出生体重1,000g未満の超低出生体重児では，胚芽細胞層の血管脆弱性，低酸素症，アシドーシスなどの因子が関与し，脳室内出血が発生することがある．また重症例では出血後水頭症が発生することが多い¹⁾．最も一般的な治療法は脳室腹腔シャント術であるが，患児の体重や髄液の性質や腹部の状態，局所および全身の感染症など，未熟児の状態によって常に実行可能な

状態とは限らず，一次的に代替の髄液排液手段が必要となることがある²⁾．手段としては反復腰椎穿刺や脳室ドレナージ留置，髄液リザーバー留置，脳室帽状腱膜下シャント術等が知られており，特に脳室帽状腱膜下シャントはより生理学的で低侵襲の方法として知られている²⁾が，本邦での施行例はまだ少ない．この度，早産超低出生体重児に脳室帽状腱膜下シャント術を施行し奏功した1例を経験したため報告する．

1) 島根県立中央病院 総合診療科
2) 島根県立中央病院 脳神経外科

1) Junior resident, Shimane Prefectural Central Hospital
2) Department of Neurosurgery, Shimane Prefectural Central Hospital

【症 例】

患者：日齢34，女児

現病歴：症例は日齢34の女児。20XX年5月，在胎23週4日，破水と出血のため母体搬送され，骨盤位の経膈分娩で出生。体重518g，身長29.5cm，頭囲20.4cm。出生後蘇生処置が行われ，気管挿管後にNICU入室となった。日齢1の超音波検査で脳室内出血を指摘された。日齢12に施行したフォローの超音波検査で脳室拡大を指摘され，その後も経時的に増悪したため日齢34に当科紹介となった。

既往歴：未熟児動脈管開存症（動脈管結紮術後），未熟児網膜症，新生児慢性肺疾患

経過：体重1,034g，気管内挿管，人工換気に依存した状態で当科初診となった。大泉門の膨隆は認めなかったが，骨縫合のわずかな離開を認めた。日齢41の超音波検査では，血腫は消退傾向であったが脳室の拡大を認め，Evans indexも0.58-0.62と上昇していた。日齢49の頭部単純CT検査でも脳室の拡大と大脳皮質の菲薄化を認めた（図1）。

頭囲も日齢54で26.0cm，日齢61で27.6cm，日齢71で29.6cmと拡大傾向を認め，日齢72，体重1,500gに達した時点で脳室帽状腱膜下シャント術を施行した。側頭部と頭頂後頭部の皮下に10cm大のスペースを作成した後，脳室穿刺し腹側チューブを帽状腱膜下に留置し終了した（図2）。術後は髄膜炎などの合併症なく

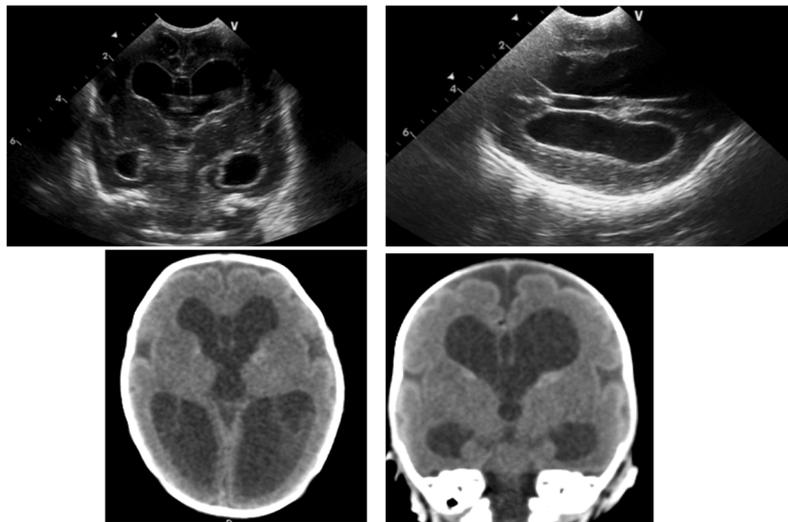


図1 上段：頭部超音波検査（日齢41）
下段：頭部単純CT（日齢49）
Evans index 0.58-0.62の脳室拡大あり。

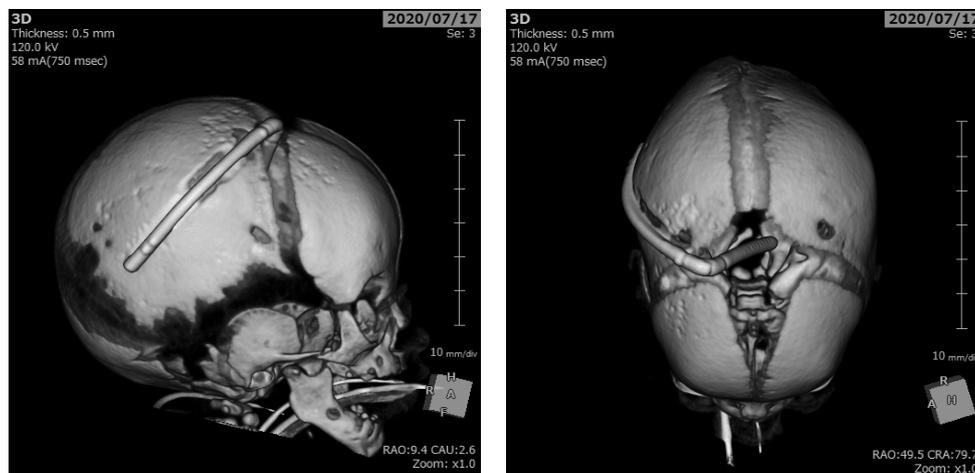


図2 頭部3D-CT（日齢72）
脳室帽状腱膜下シャント術後。

経過した。日齢75の頭囲は28.0cmに縮小を認めていた。日齢111, 術後6週時点の頭部MRI検査では帽状腱膜下スペースに髄液貯留を認め、外見上も明らかにシャント留置した右頭部の膨隆が確認できた(図3)。膨隆部の緊満は認めなかった。

その後、経時的に帽状腱膜下への髄液貯留が増大傾向となったため、日齢124, 体重が予定していた3,000gに達した時点で脳室腹腔シャント術を施行した。日齢128, 頭囲33.4cmまで縮小を認めた。日齢148, 術後25日の頭部MRI検査では、脳室は縮小しており帽状腱膜下スペースに髄液の再貯留を認めなかった(図4)。その後も合併症なく経過し、日齢198に自宅退院した。現在当院外来通院中である。

なお出生時からの頭囲の推移を表1に示す。

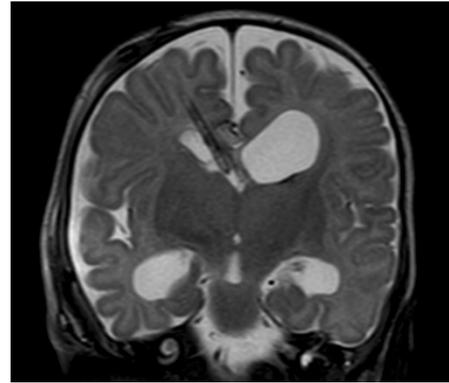


図4 頭部MRI T2強調像(日齢148) 脳室は縮小し、帽状腱膜下への髄液の再貯留も認めなかった。

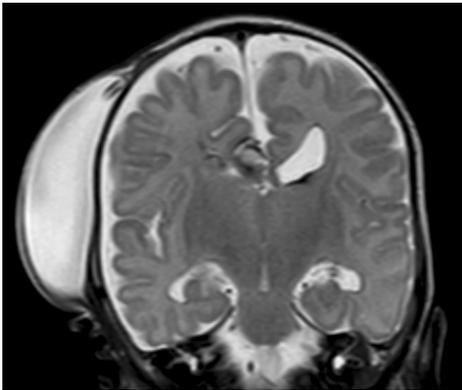
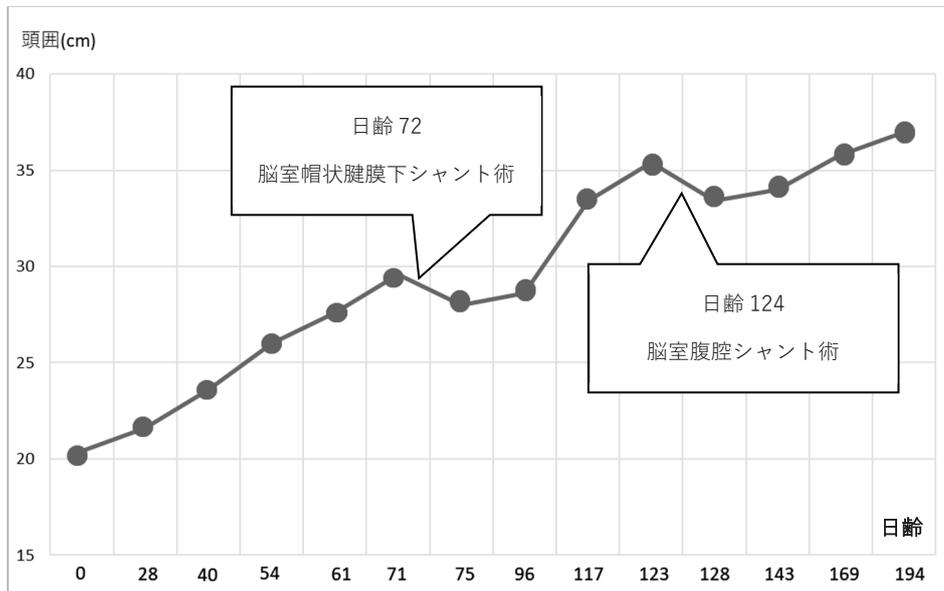


図3 右：患児写真(日齢148)
左：頭部MRI T2強調像(日齢111)

帽状腱膜下スペースに髄液貯留を認め、シャントを留置した右頭部の膨隆を確認した。

表1 頭囲の推移



【考 察】

超低出生体重児では高率に脳室内出血が発生することが知られている。Papileの分類では、重症度は次のように分けられる。Grade Iは上衣下出血、IIは脳室拡大を伴わない脳室内出血、IIIは脳室拡大を伴う脳室内出血、IVは脳実質内出血を伴う脳室内出血である。脳室内出血のうち21%で水頭症を発症し、うち39%が脳室腹腔シャント挿入を要したとの報告もあり、特にGrade III、IVの症例では水頭症の発生率が上昇する^{1,3)}。本症例はGrade IIIと考えられ、脳室内出血は消退を認めたものの、超音波検査で経時的に脳室の拡大を認め水頭症を発症したと判断した。

出血後水頭症の初期治療の目的は、頭蓋内圧亢進によって生じる二次的脳損傷から脳組織を保護することである。水頭症に対する介入が遅れることで患児の神経学的予後が悪化する可能性があり、早期の介入が望まれる⁴⁾。最も一般的な治療は脳室腹腔シャントであるが、直ちに手術を行うと感染症、シャント閉塞などの合併症が増えるおそれがあると言われている¹⁾。また、体重2000g以上での実施が推奨されており⁵⁾、本症例のように体重が2000gに達していない例では、実施可能となるまでに代替の排液手段が必要となる場合が多い。内科的治療として、アセタゾラミドとフロセミドを用いて髄液産生を低下させる方法も知られているが、急性に頭蓋内圧が進行する例では使用しづらいことに加え⁶⁾、シャント留置率の低下には寄与せず、むしろ神経学的障害の増加に関連する恐れがあるとの報告もあり⁷⁾、本症例でも使用していない。

他の代替治療の例としては、非外科的治療として反復腰椎穿刺や脳室穿刺、外科的治療として持続脳室ドレナージ留置、髄液リザーバー留置、脳室帽状腱膜下シャント術が行われている⁵⁾。

反復腰椎穿刺は早期に開始することで外科的介入を回避することができるとされている⁸⁾が、保存的治療と比較してシャント留置率や神経学的障害の有意な低下は認められず、中枢神経感染症を増加させる可能性がある⁹⁾。また脳室穿刺は、髄液感染や脳組織の損傷による孔脳症の発生の危険があり、ごく短期間の使用にとどめるべきとされている⁵⁾。

外科的治療について、米国ガイドラインではいずれの方法も未熟児出血後水頭症の管理に用いることがで

きるとされているが、現時点では脳室リザーバー留置または脳室帽状腱膜下シャント術のみが高いエビデンスをもって推奨されている¹⁰⁾。脳室帽状腱膜下シャント術は1893年に初施行された方法であり、生理学的で低侵襲な方法として知られている。特に、先行感染があり髄液のタンパク質レベルが高いか、脳室に血餅があった場合は、脳室ドレナージや髄液リザーバーよりも一般的なアプローチとなりうる¹¹⁾。本症例ではこれらの指標を明らかに認めたわけではないが、今後感染やシャント機能不全が起こるリスクも高い点や、髄液リザーバー留置と比較して感染率や脳室腹腔シャント設置率などに有意差がない点、髄液リザーバーでの頭蓋内圧のコントロールが間欠的になってしまう点⁵⁾を考慮し、脳室帽状腱膜下シャントを選択した。術後は感染やシャント機能不全などの合併症を認めず経過し、脳室拡大も見られなかったが、頭囲の拡大が進行したため、体重3,000gに達した時点で脳室腹腔シャント術を施行した⁵⁾。

なおシャント感染を防止するために、術前の抗菌薬投与や抗菌薬含浸シャントチューブの使用が有効であるとの報告があり^{12, 13)}、本症例でも脳室帽状腱膜下シャント術、脳室腹腔シャント術において術前にバンコマイシンの投与を行い¹⁴⁾、シャントチューブも抗菌薬含浸シャントを使用した。

【結 語】

脳室内出血後水頭症を呈した低出生体重児に脳室帽状腱膜下シャントを経て脳室腹腔シャント術を施行した症例を経験した。

利点、注意点を理解すれば、低体重児の一時的シャントとして脳室帽状腱膜下シャントが有用であると考えられた。

【参考文献】

- 1) 松谷雅生, 田村 晃: 脳神経外科 周術期管理のすべて 改訂第3版: メジカルビュー社, 2009; 367
- 2) Raja K. Kutty, Sunilkumar B. Sreemathyamma, Pareshe Korde, et al: Outcome of Ventriculosubgaleal Shunt in the Management of Infectious and Non-infectious Hydrocephalus in Pre-term Infants. *Journal of Pediatric Neurosciences*, 2018; 13: 322-328

- 3) Vassilyadi M, Tartaryn Z, Shamji MF, et al: Functional outcomes among premature infants with intraventricular hemorrhage. *Pediatr Neurosurg*, 2009; 45: 247-255
- 4) Lara M. Leijser, Steven P. Miller, Gerda van Wezel-Meijler, et al: Posthemorrhagic ventricular dilatation in preterm infants When best to intervene? *Neurology*, 2018; 90: e698-e706
- 5) 宮嶋雅一, 木村孝興, 近藤聡英, 他: 未熟児脳室内出血と出血後水頭症の周術期管理: 脳神経外科ジャーナル, 2013; 22(4): 276-282
- 6) Saim Kazan, T, Askin Gura, Tanju Ucar, et al: Hydrocephalus after intraventricular hemorrhage in preterm and low-birth weight infants: analysis of associated risk factors for ventriculoperitoneal shunting. *Surgical Neurology*, 2005; 64(suppl 2): 77-81
- 7) Kennedy CR, Ayers S, Campbell MJ, et al: Randomized, controlled trial of acetazolamide and furosemide in posthemorrhagic ventricular dilation in infancy: follow-up at 1 year. *Pediatrics*, 2001; 108: 597-607
- 8) Mohamed El-Dib, David D Limbrick Jr, Terrie Inder, et al: Management of Post-hemorrhagic Ventricular Dilatation in the Infant Born Preterm. *J Pediatr*, 2020; 226: 16-27
- 9) Whitelaw A: Repeated lumbar or ventricular punctures in newborns with intraventricular hemorrhage. *Cochrane Database Syst Rev*, 2017; 4(4): CD000216
- 10) 宮嶋雅一, 下地一彰, 木村孝興, 他: 米国ガイドラインに基づいた小児水頭症の標準治療: 脳神経外科ジャーナル, 2017; 26: 564-573
- 11) Andrea Nagy, Laszlo Bognar, Istvan Pataki, et al: Ventriculosubgaleal shunt in the treatment of posthemorrhagic and postinfectious hydrocephalus of premature infants. *Childs Nerv Syst*, 2013; 29: 413-418
- 12) Paul Klimo Jr, Mark Van Poppel, Clinton J Thompson, et al: Pediatric hydrocephalus: systematic literature review and evidence-based guidelines. Part 6: Preoperative antibiotics for shunt surgery in children with hydrocephalus: a systematic review and meta-analysis. *J Neurosurg Pediatr*, 2014; 14(suppl 1): 44-52
- 13) Paul Klimo Jr, Clinton J Thompson, Lissa C Baird, et al: Pediatric hydrocephalus: systematic literature review and evidence-based guidelines. Part 7: Antibiotic-impregnated shunt systems versus conventional shunts in children: a systematic review and meta-analysis. *J Neurosurg Pediatr*, 2014; 14 (suppl 1): 53-59
- 14) Conor L Mallucci, Michael D Jenkinson, Elizabeth J Conroy, et al: Antibiotic or silver versus standard ventriculoperitoneal shunts (BASICS) : a multicentre, single-blinded, randomised trial and economic evaluation. *Lancet*, 2019; 394(10208): 1530-1539