医甲様式２

論文審査の要旨(甲)

申請者領域･分野　氏名	総合医療・健康科学領域　放射線診断学教育研究分野 飯田　沙野
指導教授氏名	掛田　伸吾
論文審査担当者	主　査　　黒瀬　顕 副　査　　上野　伸哉　　副　査　　津田　英一

（論文題目）

Cerebral ventriculomegaly in myotonic dystrophy type 1: normal pressure hydrocephalus-like appearances on magnetic resonance imaging

（筋緊張性ジストロフィー患者における脳室拡大：正常圧水頭症様の変化）

（論文審査の要旨）

筋緊張性ジストロフィー1 型（DM1）は筋力低下や認知障害等種々の症状を示す疾患である．頭部 MRI は DM1 の病態評価に利用されているが，脳室拡大等の正常圧水頭症（NPH）様所見の特徴については解析されていない．本研究では DM1 の頭部 MRI 所見のうち NPH 様所見を明らかにし治療応用の可能性について検討した．

青森県の DM1 患者の多くを含む 112 例を対象とした．コントロールとして患者の年齢分布に合わせて，神経精神疾患の既往がなくかつ頭部 MRI 異常のない 50 例を選択した．これらの頭部 MRI から脳室拡大（z-Evans Index），脳梁角（CA），半卵円中心の血管周囲腔の拡大（CS-EPVS），T2WI・FLAIR 画像での側頭葉尖部と脳室周囲の白質の高信号（WML），くも膜下腔が不均衡に拡大した水頭症（DESH），脳萎縮を測定または評価した．

その結果，DM1 患者の z-Evans Index は同年代のコントロール群より有意に大きく，多変量ロジスティック回帰分析では CA および脳萎縮と独立して相関した．50 歳以上の患者 34 例中 7 例（20.6%）が DESH の脳形態であると評価された．z-Evans Index は 50 歳以上で有意に高かった．DESH は 39 歳以下よりも 50 歳以上でより一般的に認められた．

z-Evans Index が正常圧水頭症（NPH）の定量的イメージングバイオマーカーである CA と相関したこと，および 50 歳以上の患者の 20.6%で DESH が認められたことから DM1 患者は年齢が上がると NPH と同様の画像所見を示す症例が増える事が判明した．DM1 患者で脳室拡大を示す症例にシャント術を行うと認知障害が改善したという報告と併せ，MRI で NPH 様所見を示す症例では積極的に治療することで認知障害を改善できる可能性があることが示された．

本研究は今まで積極的な治療介入がなされなかった DM1 患者の認知障害に関して，NPH 様の MRI 所見を示す症例では NPH と同様の治療を行うことで認知機能改善に繋がる可能性を示したものである．臨床上極めて画期的であり，学位授与に値する．

公表雑誌等名	BMC Neuroscience　(2021)22:62