症例報告

遊走性紅斑の出現なく発症した神経ボレリア症の1例

江口 克紀11* 津坂 和文10 矢部 一郎20 佐々木秀直20

要旨:症例は56歳男性である.ダニ咬傷3か月後に腰痛,右外転神経麻痺,左顔面神経麻痺,右下肢筋力低下が出現した.経過中皮疹は出現しなかった.血清の抗ボレリアIgMおよびIgG抗体が陽性であった.神経ボレリア症と診断し,抗菌薬およびステロイドパルス療法にて改善を得た.遊走性紅斑がなくとも,ダニ咬傷歴があり多発脳神経麻痺などの神経症状をきたす症例では神経ボレリア症を考慮すべきである.

(臨床神経 2018:58:124-126)

Key words: 神経ボレリア症, 遊走性紅斑, 脳神経麻痺, 神経根炎

はじめに

ライム病はマダニにより媒介されるボレリアによる感染症であり、マダニに咬傷を受けボレリアが体内に侵入することで感染が成立する。ライム病の一部で神経症状をきたし、神経ボレリア症と呼ばれる。典型的な経過をとる場合、ダニ咬傷数週後に虫咬部に遊走性紅斑をきたし、さらにその後神経症状や関節炎が出現する。しかし皮疹なく神経症状のみがめだつ場合、ボレリア症の診断に難渋する可能性がある。今回、我々は皮疹の出現なく神経症状をきたした神経ボレリア症を経験したので報告する。

症 例

症例:56歳,男性

主訴:腰痛,右下肢筋力低下

既往歴:糖尿病, 胃癌(3年前に内視鏡的に切除).

家族歴:特記事項なし.

生活歴:兵庫県在住だが,夏期間のみ飲食店経営のため北海道道東地域に滞在している. その時期は家庭菜園の管理のため野外活動が多い.

現病歴:2016年5月中旬に北海道道東地域にて左腋窩,側腹部2か所にマダニ咬傷を受傷した.受傷部位に皮疹は出現しなかった.8月末より腰痛が出現し,徐々に増悪し痛みのため体動困難となった.腰痛は両側で灼熱感を伴い夜間に増悪する傾向にあった.近医整形外科に入院し鎮痛薬により腰痛は改善傾向にあったが,発症2週間後より右下肢の筋力低下,3週間後より複視と左顔面筋の麻痺が出現したため,

精査目的に当院に転院となった.

入院時一般身体所見:心拍数 86/分・整. 血圧 98/61 mmHg. 体温 36.6°C. その他身体所見異常なし.

入院時神経学的所見:意識清明,言語正常.右眼球外転神経麻痺,左末梢性顔面神経麻痺を認め,その他の脳神経系に異常は認めなかった.右下肢の筋力低下(徒手筋力検査:腸腰筋 2/5,大腿四頭筋 4/5,前脛骨筋 2/5,下腿三頭筋 4/5)を認め,歩行は不能であった.両膝蓋腱反射,および右アキレス腱反射は低下していた.病的反射は認めず,小脳系にも異常を認めなかった.感覚系では,右第一・第二足趾にしびれるような異常感覚があったが,表在覚の低下は認めなかった.髄膜刺激徴候は認めなかった.

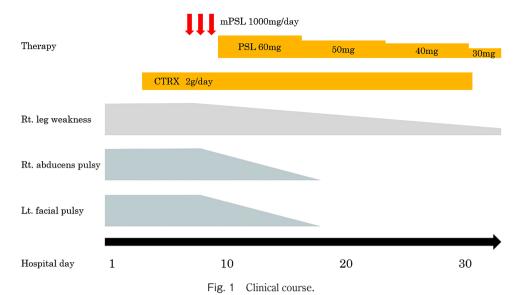
検査所見:一般血液検査は HbA1c の上昇(7.5%)があった以外に異常はなかった。血清アンギオテンシン I 変換酵素は $10.2\,U$ // と正常値であり、各種自己抗体は陰性であった。髄液検査は初圧 $150\,\mathrm{mmH_2O}$ 、髄液外観は無色透明。細胞数 $244/\mu$ /(多形核球 3、単核球 241)、蛋白 $254\,\mathrm{mg/dl}$ といずれも上昇していた。髄液糖は $100\,\mathrm{mg/dl}$ で同時血糖 $347\,\mathrm{mg/dl}$ と比べ低下していた。IgG index は 0.96 と軽度上昇していた。下肢神経伝導検査で腓骨神経の F 波出現率が右優位に両下肢とも低下し、神経根炎が疑われた(右 25%、左 56%)。F 波最少潜時は正常であった。

入院後経過 (Fig. 1): ダニ咬傷歴があることから神経ボレリア症の可能性を考え、患者血清の抗ボレリア抗体測定 (western blot 法)を行ったところ、IgM については抗原分子量 18~kD, 39~kD, 41~kD の 3 種類、IgG については 18~kD, $21\sim25~kD$, 39~kD, 41~kD, 58~kD, 93~kD の 6 種類に反応し、IgM で 3 種類以上、IgG で 5 種類以上の抗原に反応したため陽性

^{*}Corresponding author: 釧路労災病院神経内科〔〒 085-8533 北海道釧路市中園町 13-23〕

¹⁾ 釧路労災病院神経内科

²⁾ 北海道大学神経内科



Neuroborreliosis was diagnosed and the patient was treated with ceftriaxone and corticosteroids. His symptoms gradually improved. The right abducens nerve palsy and left facial palsy resolved completely and the right leg weakness improved. He was discharged on hospital day 33. CTRX: ceftriaxone, mPSL: methylprednisolone, PSL: prednisolone.

と判断した. 入院第3病日よりセフトリアキソン2g/日の投与を開始し28日間継続した. また第7病日よりステロイドパルス療法 (メチルプレドニゾロン1,000 mg/日を3日間点滴静注)を行い,その後プレドニゾロン60 mg/日の経口投与を開始し漸減していった. 第8病日より神経症状は改善傾向となり,第18病日に脳神経麻痺は消失,第20病日に独歩可能となった.第10病日に髄液検査を再検し,細胞数81/μl(多形核球2,単核球79),蛋白116 mg/dlと改善していた.第13病日に施行した下肢神経伝導検査では腓骨神経のF波出現率が改善していた(右69%,左75%).右腸腰筋の筋力低下が軽度残存したが,第33病日に独歩で自宅退院となった.

考 察

本症例はマダニ咬傷3か月後に神経根炎,多発脳神経麻痺をきたし血清学的検査により神経ボレリア症と診断された.神経症状以外に,皮疹を含めその他のライム病の症状は認められなかった.

遊走性紅斑はマダニ咬傷数日から数週間後に刺口部を中心として生じる限局性の皮疹であり、ライム病において最も特徴的な所見である¹⁾.多くは灼熱感やかゆみを伴い、10 cmを超える大きな皮疹となる。アメリカ疾病管理予防センターの診断基準では、遊走性紅斑を認めかつマダニ流行地での活動歴がある場合ライム病の診断確実となり、診断上重要な徴候と言える²⁾.

一方, ライム病における神経症状は, 虫咬後数週から数か 月後に体内に侵入したボレリアが全身に播種したのち出現する³⁾. 代表的な神経症状として脳神経麻痺, 神経根炎, 髄膜炎があげられ, 本症例ではそのうち多発脳神経麻痺と神経根炎がみられた. 脳神経麻痺はいずれの脳神経も障害されうる が、圧倒的に顔面神経麻痺が多く、しばしば両側性である。神経根炎は疼痛が前景に立つ症例が多く、本症例と同様に腰痛とともに下肢脱力をきたした例も散見される⁴⁾。 髄膜炎においては髄液検査でリンパ球優位の細胞増多をきたし、通常は軽度の頭痛や嘔気にとどまるが、非常に高度の頭痛となることもあり症例によりその程度は様々である⁵⁾。 本症例では髄液の細胞数上昇は認めたが頭痛や項部硬直は認めなかった。

ライム病の原因となるボレリアの菌種は複数存在するが、主要なライム病起因菌種は地域により異なり、アメリカでは B. burgdorferi、欧州では B. afzelii と B. garinii が主要な菌種であり、本邦を含むアジアでは B. garinii が主な起因菌である 6). B. garinii は神経症状ともっとも関連する菌種とされており 5)、アメリカや欧州においてライム病での神経症状出現頻度は $10\sim15\%$ とされているのに対し 4)、本邦では 22%と報告されておりやや神経症状の頻度が高い傾向にある 7). 一方、遊走性紅斑の出現頻度は欧米とも 70%以上とされるのに対して 5)、本邦での報告も 73%と差はない 7). しかし、本邦において本症例と同様に皮疹の出現なく神経ボレリア症をきたした例が散見され 8 0~ 10)、いずれも神経症状単独で出現しており、本邦のライム病では欧米と比較して神経症状のみをきたす割合が高い可能性がある.

遊走性紅斑はライム病の診断に重要な所見だが、遊走性紅斑を欠く場合診断に難渋する。Aucott らは遊走性紅斑を認めなかったライム病13例のうち7例がライム病診断前に他疾患と診断されており、遊走性紅斑をきたしたライム病群と比較して誤診される頻度が高いと報告している¹¹⁾。また、脳神経麻痺、神経根炎、無菌性髄膜炎は多彩な原疾患に起因する徴候であるので、これらが皮疹なく出現した場合はライム病が想起しにくい。本症例は腰痛で発症したが当初診断がつかず、脳神経麻痺など他の症状が出てから診断に至った。神経根炎

による腰痛がめだつ症例は腰椎椎間板ヘルニアなどの腰椎疾患と誤診される可能性もある⁴. 遊走性紅斑がなくとも神経根炎や脳神経麻痺などがみられる患者では, ダニ咬傷歴を詳細に聴取し, 神経ボレリア症の可能性を考慮する必要がある.

本報告の要旨は,第100回日本神経学会北海道地方会で発表し,会 長推薦演題に選ばれた.

※本論文に関連し、開示すべき COI 状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

文 献

- 1) Streere AC. Lyme disease. N Engl J Med 2001;345:115-125.
- Lyme Disease (Borrelia burgdorferi) 2017 Case Definition [Internet]. United States: Centers for Disease Control and Prevention; 2017 [cited 2017 Sep 19]. Available from: https:// wwwn.cdc.gov/nndss/conditions/lyme-disease/case-definition/2017/
- 3) Halperin JJ. Neuroborreliosis. J Neurol 2017;264:1292-1297.
- 4) Schwenkenbecher P, Pul R, Wurster U, et al. Common and

- uncommon neurological manifestations of neuroborreliosis leading to hospitalization. BMC Infect Dis 2017;17:90.
- 5) Strle F, Stanek G. Clinical manifestations and diagnosis of lyme borreliosis. Curr Probl Dermatol 2009;37:51-110.
- 6) Stanek G, Wormser GP, Gray J, et al. Lyme borreliosis. Lancet 2012;379:461-473.
- 7) 国立感染症研究所,感染症情報センター.病原微生物検出情報月報.ライム病 2006~2010年. IASR 2011;32:216-217.
- 8) 張 暁彦, 伊藤真人, 渋谷和郎ら. 急性感音性難聴を初発症 状としたライム病の1例. Otol Jpn 2011;11:232-234.
- 9) 高下純平, 林田翔太朗, 今木裕幸ら. 視神経乳頭炎を呈した神経ボレリア症の1例. 臨床神経 2015:55:248-253.
- 10) 清水久央,原谷浩司,宮崎将行ら、片側顔面神経麻痺で発症 し抗菌薬を投与したが髄膜炎を再発したライム病の1例.臨 床神経2016;56:495-498.
- Aucott J, Morrison C, Munoz B, et al. Diagnostic challenges of early Lyme disease: Lessons from a community case series. BMC Infect Dis 2009;9:79.

Abstract

A case of Lyme neuroborreliosis without erythema migrans

Katsuki Eguchi, M.D.¹, Kazuhumi Tsuzaka, M.D., Ph.D.¹, Ichiro Yabe, M.D., Ph.D.² and Hidenao Sasaki, M.D., Ph.D.²

¹⁾Department of Neurology, Kushiro Rosai Hospital
²⁾Department of Neurology, Faculty of Medicine and Graduate School of Medicine, Hokkaido University

A 56-year-old man was sustained ticks at the left axilla and flank. He did not have a rash. About 3 months after the tick bites, he developed back pain, right leg weakness, right abducens nerve palsy, and left facial palsy. Western blot analysis for serum IgM and IgG antibodies against *Borrelia* were positive. We diagnosed Lyme borreliosis. The patient was treated with antibiotics and steroids, and the symptoms improved. Our findings demonstrate that, even if erythema migrans is not obvious, neuroborreliosis should be considered when neurological signs, such as multiple cranial nerve palsies, are present.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2018;58:124-126)

Key words: neuroborreliosis, erythema migrans, cranial nerve palsy, radiculoneuritis