

症例報告

胸椎圧迫骨折を契機に増悪した左下肢有痛性筋痙攣に対し 交感神経節ブロックが奏効した 70 歳男性例

清水 文崇 川井 元晴 古賀 道明
小笠原淳一 根来 清 神田 隆*

要旨：症例は 70 歳男性である。66 歳時、第 3, 第 4 腰椎後方除圧術後より左下肢に有痛性筋痙攣が出現した。69 歳時、第 12 胸椎圧迫骨折後より筋痙攣は増悪し、強い疼痛をともない膝および足関節の自動的・他動的運動で誘発されるようになった。左 L3-S1 神経根ブロックによる感覚入力遮断で筋痙攣は消失したことから、責任病巣は左 L3-S1 神経根が考えられた。さらに、同期性筋痙攣を呈し GABA 作動薬が有効であることから、脊髄内抑制性介在ニューロン障害の関与も推察された。腰部交感神経節ブロックにより筋痙攣および疼痛の持続的な軽快がみられ、交感神経の持続的入力が筋痙攣の増悪因子であったと考えられた。本例は薬物治療に抵抗性を示す一側下肢の有痛性筋痙攣に対し、腰部交感神経節ブロックが有効であったまれな一例である。

(臨床神経, 48 : 733—736, 2008)

Key words：有痛性筋痙攣, 交感神経節ブロック, 神経根ブロック, 抑制性介在ニューロン

はじめに

末梢神経損傷後に損傷部あるいはその近傍の筋にまれに不随意運動が生じることが知られており、現在までにジストニアやミオクローヌス、振戦の報告がある¹⁾²⁾。われわれは第 3, 4 腰椎後方除圧術と第 12 胸椎圧迫骨折を契機に出現・増悪した一側下肢の有痛性筋痙攣に対して、腰部神経根ブロックおよび交感神経節ブロックが奏効した 70 歳男性例を報告する。

症 例

主訴：左下肢の痛みをともなう筋痙攣。

既往歴・家族歴・生活歴：特記事項なし。

現病歴：66 歳時、10m 程度歩行すると左下肢の痛みが出現するようになった。近医整形外科を受診し、腰椎 MRI で第 4, 5 腰椎椎間腔狭窄をみとめ腰椎椎間板ヘルニアと診断され、腰椎後方除圧術を施行された。手術 10 日後より左下肢に疼痛をともなうピクツとした筋痙攣が出現した。その後、筋痙攣が持続したため複数の病院を受診し、最大量としてクロナゼパム 2mg/日、フェニトイン 300mg/日、バルプロ酸 600mg/日、ダントロレン 150mg/日、ジアゼパム 15mg/日、チザニジン 3mg/日などを単独あるいは併用で投与されたがすべて無効であった。バクロフェン 30mg/日を内服するといった

筋痙攣が軽快したが、その 6 カ月後には無効となった。69 歳頃尻もちをつき第 12 胸椎を圧迫骨折した。その 2 日後より、左下肢に痛みをともなうガクガクとした筋痙攣が昼夜を問わず出現し、歩行が困難となった。2005 年当科入院した。

入院時現症：身長 168cm, 体重 64kg, 脈拍 58/分, 血圧 151/82mmHg。L3/4 椎体レベルに手術痕あり。神経学的所見では脳神経、上肢運動系に異常なく、明らかな筋力低下や筋萎縮はみられなかったが、筋痙攣のため歩行は不可能であった。腱反射は両上肢と右下肢では正常。左下肢の腱反射は筋痙攣が誘発されることから正確な評価が困難であったが、明らかな亢進はみられなかった。左側バビンスキー徴候、チャドック反射陽性であった。感覚系・自律神経系に異常はなかった。筋痙攣は左下肢に限局し、2~3 秒程度持続する前脛骨筋に限局した強い筋収縮にひき続いて、大腿四頭筋、内転筋群、大腿二頭筋、前脛骨筋、腓腹筋に 4~5Hz の律動同期性の強い疼痛をともなう筋収縮が出現した。筋痙攣の頻度は 1 日 100 回程度で 5 分程度持続し、股関節と膝関節の屈曲、足関節の背屈をともなう三重屈曲様の肢位がみられた。足関節および膝関節の随意運動によって筋痙攣が誘発され、同部の関節運動を他動的におこなっても筋痙攣は誘発された。

検査所見：血液生化学検査は異常なし。髄液検査は細胞数 2/μl, 糖 60mg/dl, 蛋白 53mg/dl であった。髄液 IgG インデックスは 0.56, ミエリン塩基性蛋白は正常、オリゴクローナル IgG バンドは陰性であった。脊髄 MRI では Th12 椎体圧迫骨折があり、L45 椎体後方除圧術後であったが、明らかな脊髄

*Corresponding author: 山口大学医学部附属病院神経内科 [〒755-8505 山口県宇部市南小串 1-1-1]

山口大学大学院脳・神経病態制御医学神経内科

(受付日: 2008 年 6 月 23 日)

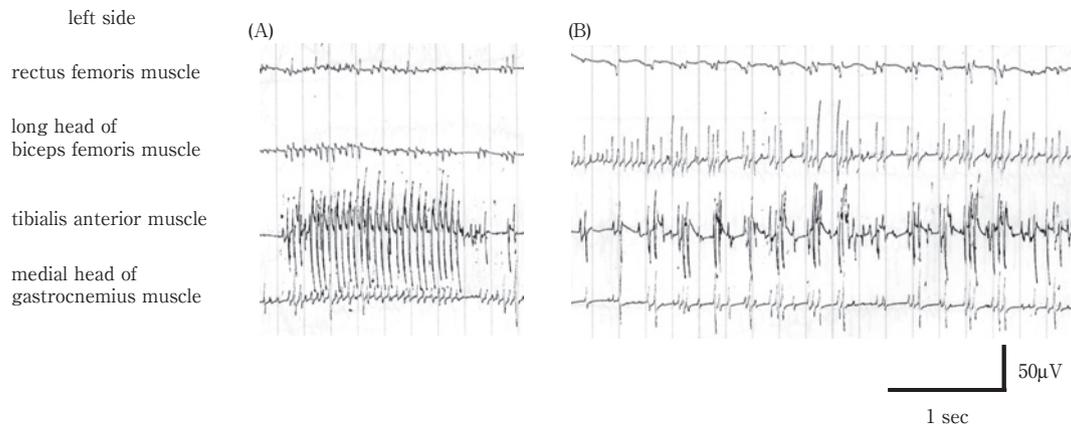


Fig. 1 Surface electromyogram was recorded from the left leg muscles during involuntary muscle contraction. After continuous discharges of motor unit potentials (MUPs) in the tibialis anterior muscle (A), rhythmic and synchronous MUPs in rectus femoris muscle, long head of biceps femoris muscle and medial head of gastrocnemius muscle were observed (B).

圧迫や髄内信号変化、神経根の圧迫などはみとめなかった。表面筋電図では左前脛骨筋に2秒程度持続する強い筋収縮にひき続いて(Fig.1(A))、左大腿直筋や前脛骨筋、大腿二頭筋、腓腹筋にほぼ同期した4~5Hzの律動性で持続約30秒の群化放電をみとめた(Fig.1(B))。神経伝導検査では左腓腹神経においてSNAPがわずかに低下(9.7µV)していたが、感覚神経伝導速度は正常であった。運動神経では左脛骨神経、左腓骨神経で遠位潜時、伝導速度、CMAPは正常であったが、F波の出現率がそれぞれ12%、31%と低下しており神経根障害が示唆された。針筋電図では左大腿直筋や左前脛骨筋、左腓腹筋、左Th10-L5椎体レベルの傍脊柱筋で、干渉波の形成不良と、高振幅のMUP(4~5mV)をみとめた。安静時に自発放電はみられなかった。脳波は基礎律動が9~10Hzのα波で突発性異常波は観察されなかった。体性感覚誘発電位検査では、左脛骨神経刺激は筋痙攣が誘発されるため施行不可能であった。右脛骨神経刺激での中枢神経伝導時間は正常。

入院後経過：以前使用した薬剤の中で、唯一バクロフェンが有効であったことからGABA作動薬が筋痙攣に対して有効である可能性を考え、カルバマゼピン200mg/日を内服開始したところ、筋痙攣は著明に改善した。しかし内服5日後、体幹部に皮疹が出現したためやむなく中止した。神経伝導検査、針筋電図で左下肢神経根障害が示唆され、位置覚を主体とした感覚入力で筋痙攣が誘発されることより、責任病巣と感覚入力の関与を明らかにするため、透視下で左L2、L3、L4、L5、S1の各神経根に1%塩酸リドカイン2ml、ベタメタゾン2mgをもちいて順次神経根ブロックを施行した。L5とS1レベルの神経根ブロックは左足首関節運動により誘発される筋痙攣に対し奏効し、L3とL4レベルのブロックは左膝関節運動により誘発される筋痙攣に対し奏効した。L2神経根のブロックは無効であった。各神経根ブロック直後に診察をおこない、神経根の感覚分布に沿った触覚・痛覚・振動覚の低下が確認された。この際、筋力はほぼ保たれていたことより運動神経は遮断されていないと考えられた。ただし筋痙攣に

対する神経根ブロックの効果は3時間程度で消失した。また、筋痙攣が出現する際に強い疼痛をとまなうことより複合局所性疼痛症候群(CRPS)にとまなう不随意運動と共通点があると考え、L1-L3左腰部交感神経節ブロックを施行したところ、筋痙攣と疼痛は著明に軽減し、介助による歩行が可能となった。左腰部交感神経節ブロック後には、左下肢の温感が持続しサーモグラフィーにて左下肢の血流増加を確認できた。左腰部交感神経節ブロックの効果は3カ月程度持続した。

考 察

本例の筋痙攣は椎体手術を契機に発症して圧迫骨折後に増悪し、左下肢の多髄節にわたる筋群にみられ、電気生理学的検査では左下肢神経根障害が示唆された。L3-5、S1の神経根ブロックによる感覚入力の遮断が一時的に奏効したことより、左L3からS1までの神経根からの感覚入力筋痙攣を誘発していると考えられた。したがって、手術ならびに骨折に起因した神経根の軽微な損傷が筋痙攣の誘因となったものと推測した。また、画像上明らかな脊髓内病変をみだしえなかったが、左下肢病的反射が陽性で痛性筋痙攣が出現する際に三重屈曲様の肢位をとまなうこと、表面筋電図で左下肢近位筋、遠位筋の主動筋および拮抗筋に4~5Hzの同期性筋放電をみとめたこと、カルバマゼピン、バクロフェンなどのGABA作動薬が有効であったことより、脊髓内抑制性介在ニューロン障害を介した脊髓前角細胞の異常興奮の関与が推察された。

本例の表面筋電図は、GABA系脊髓抑制性介在ニューロンが選択的に障害されるstiff person症候群でみられる反射性ミオクローヌスであるspasmodic reflex myoclonusと類似点がある³⁾。しかし、spasmodic reflex myoclonusでみられる同期収縮の間隔は12~16Hzであり³⁾、本例でみとめた4~5Hzの同期収縮と比較し速いため電気生理学的にことなる。一方、ラットをもちいた実験モデルで脊髓の抑制性介在ニューロン

から放出されるグリシンに対する受容体が障害されると5~15Hzの同期性筋放電が出現することが知られており⁴⁾、本例の同期収縮と類似する。本例ではグリシンの関与は証明できなかったが、脊髄内抑制性介在ニューロン障害によるグリシンあるいはGABAの欠如が筋痙攣の病態に関与している可能性が推測された。

手術や外傷により末梢神経が損傷されたばあい、通常その支配する筋は麻痺に陥るが、まれにその支配する筋あるいはその近傍の筋に不随意収縮をきたすことがある¹²⁾。末梢神経損傷後に生じる不随意運動の機序に関してはいまだに定説はなく、神経根レベルで感覚系と運動系の混信伝導、あるいは異常再支配により生じるとする説¹⁾、末梢性機序だけでなく脊髄内での運動系や感覚系、交感神経系をふくめた異常回路形成が原因であるとする説²⁾がある。また、一側の末梢神経障害により脊髄ミオクローヌスが生じうることも知られており⁵⁾⁶⁾、緒方⁶⁾は腰部硬膜外ブロック後に出現した脊髄ミオクローヌスの一例を報告し、硬膜外ブロックにともなう神経根損傷による神経根での異常発火が脊髄内抑制性介在ニューロン障害と前角細胞の異常興奮を惹起したと述べている。

本例は、腫脹や冷温感、発汗障害、筋萎縮などいわゆるCRPS症状の合併は無かった。しかし、神経根損傷が誘因となり筋痙攣に強い疼痛をとまなうという特徴を有し、腰部交感神経節ブロックで軽快したことより、末梢神経あるいは神経根の損傷との関連や疼痛との関連が想定されているCRPSにとまなう不随意運動^{8)~10)}と類似点があると考えた。CRPSにとまなう不随意運動では、少なくともそれらの一部に中枢神経系の関与、すなわち末梢神経あるいは神経根の損傷などの感覚刺激により、脊髄あるいは大脳皮質レベルでの神経連絡の再構築を介しての異常運動の発生が推測されている^{8)~10)}。一方、CRPSにとまなう運動合併症では振戦やスパズム、ジストニアなどの不随意運動、あるいは麻痺など様々な症状が出現しうる。その一部において交感神経節ブロックで症状の軽快がえられることが知られている^{8)~11)}。本例でも、軽微な神経根損傷に起因した求心性入力異常がなんらかの機序で脊髄内に神経連絡の再構築を生じ、錐体路や抑制性介在ニューロンをふくめた運動系、感覚系、交感神経系にわたる異常回路を形成したと推測した。さらにCRPSにとまなう不随意運動の機序と同様の交感神経の持続的入力刺激が脊髄内異常回路の増悪因子となっているため、交感神経節ブロックによる入力遮断が筋痙攣の改善に寄与したものと考えた。

本例で多髄節にわたる同期性筋痙攣を呈した機序については、propriospinal myoclonusに類似した機序が考えられる。propriospinal myoclonusでは脊髄内の1つの髄節に生じた異常興奮がpropriospinal tractを通り他の髄節におよぶ機序が推測されている^{12)~14)}。propriospinal myoclonusは通常、頸髄あるいは胸髄を起源とし上下方向へ伝播するため、体幹を中心とした広範なミオクローヌスの表現型をとるばあいがほとんどであり^{12)~14)}、本例は一側下肢に局限していることからpropriospinal myoclonusとは区別される。一方、spinal segmental myoclonusのうちミオクローヌスが近隣の数髄節に

およぶ症例では、異常興奮がpropriospinal tractを通り近隣の髄節に伝播する機序が考えられており、propriospinal myoclonusに比しミオクローヌスの範囲が局限するばあいが多い^{12)~15)}。本例では、前脛骨筋に局限した強い筋収縮後に多髄節にわたる律動同期性筋痙攣が出現しており、前脛骨筋を支配するL4-5付近を起源とした異常興奮がpropriospinal tractを通り近隣の髄節に伝播し¹²⁾¹³⁾、L2-S2髄節にわたる片側脊髄前角細胞の広範な異常興奮を引きおこしたと考えた。

本例は、手術ならび外傷を契機に発症し、薬剤治療に抵抗性を示す有痛性筋痙攣に対して腰部交感神経節ブロックが有効であったまれな症例であった。内服治療に抵抗性の有痛性筋痙攣に対して、責任病巣の同定、および機序に関する検討を十分におこなった上で、交感神経節ブロックは考慮すべき治療の選択肢の一つと考えられた。

本文の要旨は、第79回日本神経学会中国・四国地方会(2005年12月10日、愛媛)、第24回日本神経治療学会総会(2006年7月13日、横浜)において発表した。

謝辞：腰部神経根ブロック、交感神経節ブロックを施行していただいた山口大学医学部大学院病態薬理学麻酔蘇生科 山本由香先生、川井康嗣先生に深謝いたします。

文 献

- 1) Jankovic J: Post-traumatic movement disorders. Central and peripheral mechanism. *Neurology* 1994; 44: 2006—2014
- 2) Nobrega JC, Campos CR, Limongi JC, et al: Movement disorders induced by peripheral trauma. *Arp Neuropsychiatr* 2002; 60: 17—20
- 3) Meinck HM, Ricker K, Hülser PJ, et al: Stiff man syndrome: neurophysiological findings in eight patients. *J Neurol* 1995; 242: 134—142
- 4) Simon ES: Involvement of glycine and GABA receptors in the pathogenesis of spinal myoclonus: in vitro studies in the isolated neonatal rodent spinal cord. *Neurology* 1995; 45: 1883—1892
- 5) Jankovic J, Pardo R: Segmental myoclonus. Clinical and pharmacologic study. *Arch Neurol* 1986; 43: 1025—1031
- 6) 緒方勝也, 山田 猛, 由村健夫ら: 腰痛のためにおこなった硬膜外ブロック後に発症した脊髄性ミオクローヌスの1例. *臨床神経* 1999; 39: 658—660
- 7) Capelle HH, Wöhrle JC, Weigel R, et al: Movement disorders after intervertebral disc surgery. Coincidence or causal relationship? *Mov Disord* 2004; 19: 1202—1208
- 8) Schwartzman RJ, Kerrigan J: The movement disorder of reflex sympathetic dystrophy. *Neurology* 1990; 40: 57—61
- 9) Jankovic J, Van der Linden C: Dystonia and tremor induced by peripheral trauma: predisposing factors. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1988; 51: 1512—1519
- 10) 高橋 昭: 反射性交感神経ジストロフィーの病態と診断. *神経内科* 2001; 54: 292—296

- 11) Yokota T, Furukawa T, Tsukagoshi H, et al: Motor paresis improved by sympathetic block. A motor form of reflex sympathetic dystrophy? Arch Neurol 1989; 46: 683—687
- 12) 西山和利, 宇川義一, 武田浩一ら: Propriospinal myoclonus の 1 例. 臨床神経 1993 ; 33 : 765—770
- 13) 中里良彦, 野村恭一, 富岳 亮ら: Spinal segmental myoclonus に propriospinal myoclonus をともなった 1 例. 電気生理学的検討. 臨床神経 1998 ; 38 : 948—950
- 14) Vetrugno R, Provini F, Plazzi G, et al: Focal myoclonus and propriospinal propagation. Clin Neurophysiol 2000; 111: 2175—2179
- 15) 加藤元博: Spinal myoclonus. 神経進歩 1984 ; 28 : 790—796

Abstract

A case of the painful muscle spasm induced by the thoracic vertebral fracture: Successful treatment with lumbar sympathetic ganglia block

Fumitaka Shimizu, M.D., Ph.D., Motoharu Kawai, M.D., Ph.D., Michiaki Koga, M.D., Ph.D.,
 Jun-ichi Ogasawara, M.D., Ph.D., Kiyoshi Negoro, M.D., Ph.D. and Takashi Kanda, M.D., Ph.D.
 Department of Neurology and Clinical Neuroscience, Yamaguchi University Graduate School of Medicine

We report a 70-year-old man, who developed painful involuntary muscle contraction of the left leg after the lumbar discectomy, which exacerbated after a vertebral fracture of Th12. This involuntary movement was accompanied with the abnormal position of left leg simulating triple flexion response, and was induced by active or passive movement of his left knee and foot joints. Several drugs including benzodiazepines and dantrolene were ineffective, although treatment with baclofen or carbamazepine was effective. These findings suggest that hyperexcitability of the anterior horn cells following the disturbance of spinal inhibitory interneurons was involved.

Electophysiological studies suggested the disturbance of left lumbar nerve roots. The spinal root blocks from L3 to S1 were performed, after which the painful involuntary muscle spasm was resolved. The lumbar sympathetic ganglia block was also effective; suggesting that abnormal afferent neuronal input to spinal cord was caused by the nerve root trauma which triggered the formation of secondary abnormal network in the spine. Lumbar sympathetic ganglia block should be recommended to a therapeutic option for the refractory painful muscle spasm of the leg.

(Clin Neurol, 48: 733—736, 2008)

Key words: painful muscle spasm, spinal root block, sympathetic ganglia block, inhibitory interneuron