

症例報告

神経因性膀胱を合併した延髄外側症候群の1例

徳重 真一¹⁾ 前川 理沙¹⁾ 能勢 頼人²⁾ 椎尾 康^{1)*}

要旨：症例は45歳男性である。後頭部痛で発症、歩行のふらつき・右半身の発汗低下をきたし第6病日に来院した。頭部MRIで右延髄背外側に急性期梗塞をみとめ入院。尿閉のため膀胱カテーテルを留置した。第8病日のシストメトリーでは膀胱収縮能および尿意は正常であったが、膀胱カテーテルを抜去したところ自排尿は困難であった。原因として、排尿筋外括約筋協調不全(DSD)を考えた。第19病日には排尿は可能となっていた。延髄外側梗塞にともなう排尿障害の報告はしらべえたかぎりでは過去に5例のみと少なく、全例で膀胱収縮能の異常を呈した。膀胱収縮能が正常で排尿障害をきたした延髄外側症候群の例は本稿が初の報告となる。

(臨床神経 2012;52:79-83)

Key words：神経因性膀胱、排尿筋外括約筋協調不全、延髄外側症候群、シストメトリー

はじめに

排尿障害は脳血管障害の重要な合併症である。とくに脳幹梗塞における排尿障害は、報告によって違いはあるものの27~49%にみられるとされる¹⁾。ところが延髄外側症候群にかぎれば排尿障害の報告はきわめて少ない。また、排尿にかかわる神経系のメカニズムは、猫などの動物では詳しく検討されているものの²⁾³⁾ヒトでは十分に解明されておらず、排尿障害の病態には依然として不明な点も多い。このたびわれわれは右延髄外側症候群に尿閉を合併し自然軽快した症例を経験したので、既報例との比較をふくめて報告する。

症 例

症例：45歳 男性

主訴：頭痛、歩行障害

既往歴：特記すべき事項なし。

生活歴：20歳~35歳まで1日40本の喫煙歴あり、以後禁煙。機会飲酒。

現病歴：第1病日、後頭部痛・歩行時のふらつきが出現した。鎮痛薬を内服し経過観察していた。第5病日、右半身の発汗低下を自覚し近医を受診した。頭部CT、髄液検査で異常なく帰宅した。第6病日、ふらつきの増悪・嘔吐を自覚し当院を受診した。頭部MRIで右延髄背外側に急性期梗塞をみとめ、入院となった。

入院時身体所見：身長168cm、体重65.9kg、BMI23.3。血圧184/110mmHgと高値。頸部血管雑音を聴取せず。その他頭

部、頸部、胸腹部、四肢の身体所見に特記すべき異常なし。

神経学的所見：意識は清明、脳神経系では右眼瞼下垂、右縮瞳、左向き眼振、右軟口蓋拳上不良、カーテン徴候陽性、構音障害、嚥下障害をみとめた。感覚系では顔面をふくむ左半身で温痛覚低下をみとめた。深部感覚障害はみとめられなかった。他には体幹失調、顔面をふくむ右半身での発汗低下、尿閉をみとめた。なお筋力・腱反射には異常をみとめなかった。

一般検査所見：白血球12,200/ μ lと高値であり、尿中WBC(3+)、尿潜血(3+)と尿路感染症をうたがう所見であった。

頭部MRI(Fig.1)：拡散強調像・T₂強調像で右延髄背外側に高信号域をみとめ、同部位の急性期梗塞と考えられた(Fig.1A, B)。MRAでは右椎骨動脈の描出が不良となっていた(Fig.1C)。

入院後経過：第6病日(入院当日)、尿閉に対して膀胱カテーテルを留置したところ740mlと多量の残尿をみとめた。抗凝固療法としてヘパリン10,000単位/日の投与を開始した。

第8病日にシストメトリーを施行した(Fig.2)。尿意は注水量160ml、200ml、210mlの時点で感じられ、膀胱内圧は最高で62cmH₂Oまで上昇するなど、尿意・膀胱収縮能はいずれも正常であった。また超音波検査では前立腺肥大など尿路狭窄をきたす疾患も否定的であった。

構音障害・嚥下障害は入院翌日から改善傾向となり、第10病日に内視鏡下で施行した嚥下機能検査では嚥下反射は良好で明らかな誤嚥はなく、第11病日に食事摂取を開始した。

第12病日にヘパリンを中止し、梗塞の再発予防のためアスピリン100mg/dayを内服開始した。

第13病日に膀胱カテーテルを試験的に抜去したが、5時間

*Corresponding author: 東京通信病院神経内科 [〒102-8798 東京都千代田区富士見2-14-23]

¹⁾東京通信病院神経内科²⁾同 泌尿器科

(受付日：2011年6月2日)

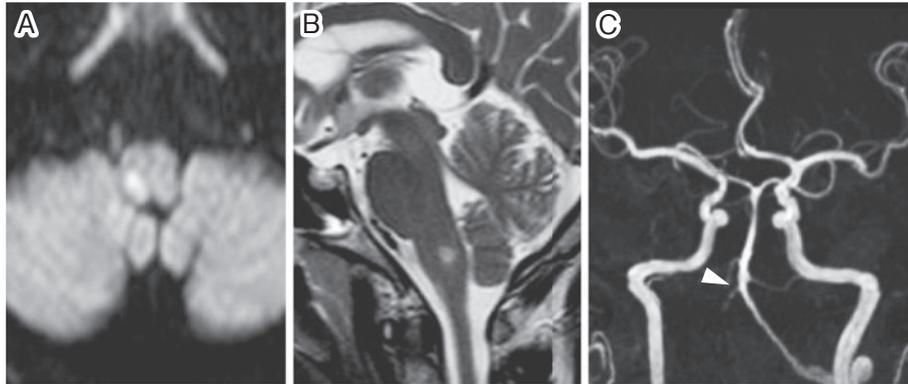


Fig. 1 Diffusion weighted image and MR angiography on the 6th day after onset.
A: Diffusion weighted image (Axial, 1.5T; TR 3,073ms, TE 72ms), B: T₂ weighted image (Sagittal, 1.5T; TR 4,405ms, TE 100ms), C: 3D MR angiography (1.5T; TR 19ms, TE 6.9ms)
Arrow: The right vertebral artery is absent in MR angiography.

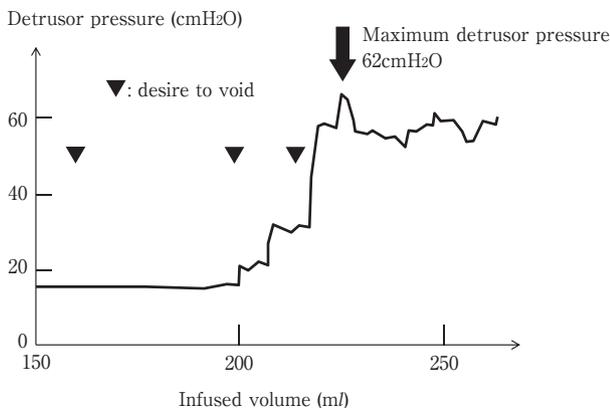


Fig. 2 Cystometry on the 8th day after onset.

経過しても自尿がまったくみられず、カテーテルを再留置した。

第 19 病日にふたたび膀胱カテーテルを抜去したところ、自排尿が可能となっており、排尿後の残尿もみとめなかった。その後も尿閉はみられずカテーテル再留置の必要はなかった。

第 26 病日、シストメトリーを再検した。膀胱の最大収縮圧、流速とも異常はなく、また膀胱容量 329ml で蓄尿機能にも異常はないことが確認できた。

第 35 病日に退院となった。このとき左半身の温痛覚低下および右縮瞳は残存していたが、他の症状は軽快していた。

以後、アスピリン 100mg 内服継続し外来通院にて経過観察中である。退院後 10 カ月を経過した現在まで、脳梗塞の再発や排尿障害の再発はみられていない。

考 察

まず比較的若年で発症した脳梗塞の機序を検討した。発症時の後頭部痛、MRA で右椎骨動脈の描出が不良であったことから、臨床的に右椎骨動脈解離を考えた。一般に椎骨動脈解離の危険因子としては、頸部の外傷や理学療法の施行⁴⁾⁵⁾、片

頭痛⁶⁾、Marfan 症候群⁵⁾、fibromuscular dysplasia⁷⁾、Ehlers-Danlos 症候群⁵⁾、喫煙⁵⁾、高血圧⁵⁾などが知られている。本症例では濃厚な喫煙歴が危険因子の一つと考えられ、明らかな他の危険因子はなかった。

延髄外側症候群の典型例では同側顔面の温痛覚障害をみとめるのに対し、本例では同側ではなく対側顔面の温痛覚低下をみとめており、この原因につき検討した。顔面の温痛覚を伝える一次ニューロンは同側の三叉神経脊髄路核まで下行し、ここより出た二次ニューロンは対側へと交叉し視床へ上行する。本症例では、顔面の温痛覚の伝導路において、同側を下行する一次ニューロンではなく、三叉神経脊髄路核から出て対側に交叉した後の二次ニューロンを延髄レベルで障害したことにより、対側顔面の温痛覚障害をきたしたものと推測される。Kim ら⁸⁾の報告では、34 例の延髄外側症候群の症例のうち病変が比較的腹内側に広がっていた 9 例で病変と対側の顔面に温痛覚障害がみられた。

左半身の感覚障害、右縮瞳は退院後も遷延したが、嚥下・構音障害は数日間で軽快するなど、症候ごとにことなる経過をたどった。これは、感覚障害、縮瞳の原因病巣である脊髄視床路、交感神経路が病巣の中心部に近かったためである可能性がある。斎藤¹²⁾の報告した排尿障害をともなう延髄外側症候群例においても、嚥下障害は早期に軽快したのに対しホルネル徴候・温痛覚障害・排尿障害は比較的長期にわたり残存するなど、症候ごとの経過に差異がみられた。

本症例の最大の特徴は排尿障害である。榊原⁹⁾は脳幹梗塞 30 名のうち 8 名 (27%) に排尿障害がみられたと報告した。部位別にみると、延髄病変を有する 11 名中 2 名 (18%)、橋病変の 20 名中 7 名 (35%) に排尿障害があり、中脳に病変を有する 2 例では排尿障害はなかった。しかし延髄の外側部にみれば排尿障害の報告は 5 例のみ^{9)~12)}ときわめてまれであり、この原因を考察した。

Fig. 3 はヒトの排尿・蓄尿を司る神経系の模式図である³⁾。胸腰髄から出る下腹神経の交感神経遠心路は膀胱の排尿筋を弛緩させ膀胱流出路を収縮させることで排尿を抑制する。仙

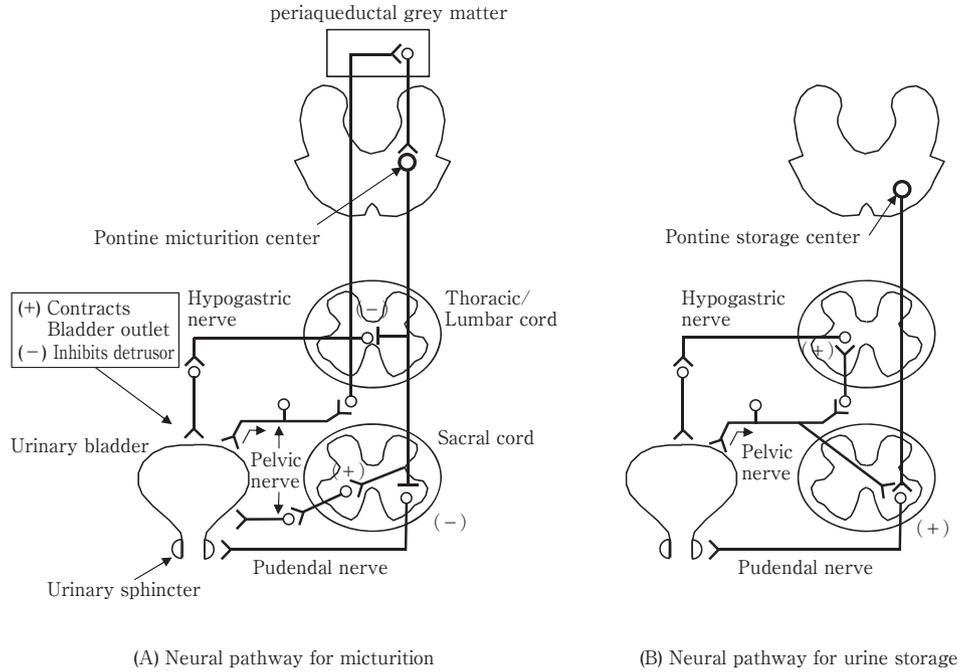


Fig. 3 Schematic diagram of central nervous pathways for micturition and urine storage.

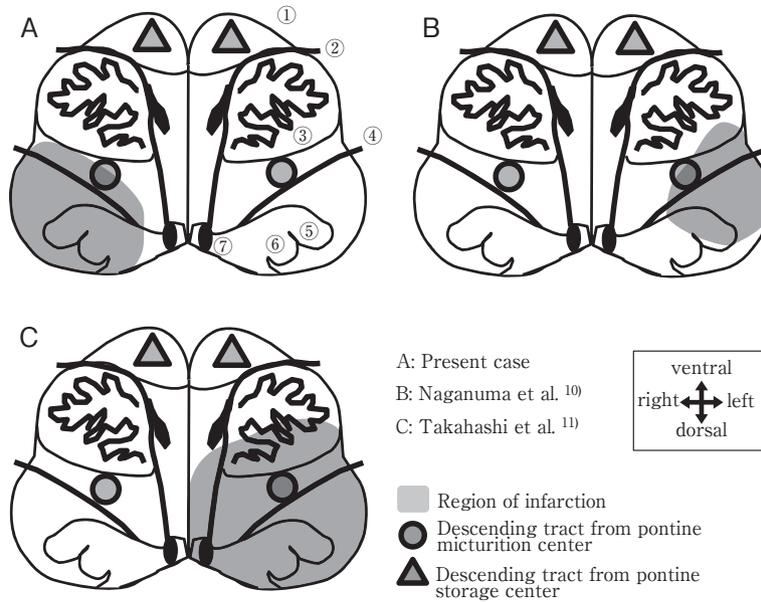


Fig. 4 The axial section of medulla at the level of inferior olivary nucleus and the regions of infarction revealed by MRI in three cases of lateral medullary infarction with dysuria.

① pyramidal tract, ② hypoglossal nerve, ③ inferior olivary nucleus, ④ vagus nerve, ⑤ cuneate nucleus, ⑥ gracile nucleus, ⑦ hypoglossal nucleus

髄から出る骨盤神経にふくまれる副交感神経の遠心路は排尿筋を収縮させる。また膀胱からは骨盤神経の求心路が出ており、膀胱内圧の上昇はこの求心路を介して中枢に伝達される。一方、括約筋は仙髄から出る陰部神経の支配を受けている。これらの機構が、より上位の排尿中枢や蓄尿中枢により制御される。まず排尿時 (Fig. 3A) には、橋被蓋の青斑核近傍にあ

る橋排尿中枢からの下降路が胸腰髄レベルで下腹神経を抑制、仙髄レベルで骨盤神経を興奮させることで排尿筋を収縮させ、同時に陰部神経を抑制することで括約筋を弛緩させる。一方蓄尿時 (Fig. 3B) には、橋排尿中枢の近傍にある排尿抑制領域からの下降路が陰部神経を興奮させることによって括約筋を収縮させる。

Table 1 Summary of six cases with dysuria due to lateral medullary infarction.

Case no.	Authors	Age/Sex	Lesion	Neurological findings						Type of Dysuria
				Facial sensation	Body sensation	Ataxia	Dysarthria	Dysphagia	Horner sign	
1	Sakakibara et al ⁹⁾	48/M	L Medulla	-	R	+	-	-	+	-
2	Sakakibara et al ⁹⁾	52/M	L Pons, Medulla	-	R	-	+	+	-	DH
3	Naganuma et al ¹⁰⁾	59/M	L Medulla	-	-	-	+	+	-	AB
4	Takahashi et al ¹¹⁾	69/M	L Medulla	L	R	+	+	+	-	DSD AB
5	Saito et al ¹²⁾	50/M	L Medulla	L	R	+	+	+	+	AB
6	Tokushige et al (present case)	45/M	R Medulla	L	L	+	+	+	+	DSD

DH: Detrusor Hyperreflexia

AB: Atonic Bladder

DSD: Detrusor-Sphincter Dyssynergia

また、排尿・蓄尿の中枢からの下降路の通過する場所は、主にネコをもちいた動物実験から次のように考えられている。橋排尿中枢からの下降路¹³⁾は、やや腹側を通り下オリブ核の背側を通過して脊髄側索腹側部を下降する。一方排尿抑制中枢からの下降路¹⁴⁾¹⁵⁾は錐体路に合流したのち脊髄前索を下降する。

Fig. 4A は延髄の下オリブ核を通る水平断面である。○は橋排尿中枢からの下降路、△は排尿抑制中枢からの下降路が通過する箇所であるが、本症例の梗塞範囲は排尿中枢下降路にまでおよぶ可能性が高い。一方、延髄腹側に位置する排尿抑制領域の下降路は影響を受けない。このように、本症例では橋排尿中枢からの下降路が障害されたことが尿閉の原因と考えられる。

MRI 画像で確認できるかぎり、本症例の病変の範囲は典型的な延髄外側症候群とくらべて大差はない。それでも本来まれなはずの排尿障害をきたしたのは、画像で描出された範囲よりも腹側にまで障害がおよんだためと推測される。対側顔面の温痛覚障害を呈した点も、障害が実際には典型例に比べて腹側におよんでいたことを示唆する。

膀胱収縮能は正常であるにもかかわらず自排尿が不可能であった点は、排尿筋外括約筋協調不全 (DSD) のためと考えられる。谷川ら¹⁶⁾により、橋排尿中枢付近の病変を有する多発性硬化症で DSD をきたした例が報告されており、その下降路が障害された本症例でも DSD をきたしたことは説明可能である。

最後に既報例との比較をおこなった。Table 1 は、排尿障害をとともなう延髄外側症候群の既報例 5 例と本症例の特徴を比較したものであり、Fig. 4 は、この中で MRI 画像が記載されていた 2 例につき、病変の範囲を本症例と比較したものである。

症例 1⁹⁾ は夜間頻尿をきたしたが尿閉にはいたらなかった。症例 2⁹⁾ は橋から延髄にかけての左背外側に梗塞をみとめ、頻尿、失禁をきたした。症例 3¹⁰⁾ は梗塞巣が延髄の比較的外側に

とどまる (Fig. 4B)。本症例とことなり無緊張性膀胱をきたした。症例 4¹¹⁾ は、症例 3 よりも腹側かつ内側に梗塞がおよんでおり (Fig. 4C)、無緊張性膀胱に加えて DSD をきたした。症例 5¹²⁾ は左延髄の梗塞による高度の無緊張性膀胱を呈した。これら既報例との比較を通して、本症例は、膀胱自体の収縮は正常でありながらも DSD で排尿障害をきたした点が特徴といえる。

類似症例で病変が延髄背側に位置した 2 例 (Fig. 4B, C) でも、本症例と同様に橋排尿中枢からの下降路は障害され、橋蓄尿中枢からの下降路は障害をまぬがれたと考えられる。これら 2 例で無緊張性膀胱をきたしたのは、橋排尿中枢から腰仙髄へ下降して膀胱収縮を司る神経経路が延髄レベルで障害を受けたためと推測される。しかし、本症例では他の 2 例とことなり膀胱の収縮は正常で、括約筋の弛緩に障害をきたしたものと考えられた。このことから次のような仮説が成り立つ。橋排尿中枢からの下降路には、膀胱の収縮を司る経路と、括約筋の弛緩を司る経路とが空間的に分かれて存在しており、梗塞の範囲によっては両経路の障害に差異が生じるというものである。これを検証するには、多数の症例で梗塞の範囲と排尿障害のパターンを比較することが必要であろう。

延髄外側症候群に排尿障害を合併することはきわめてまれであり、その病態解明には更なる症例の蓄積が必要と考え、ここに報告した。

文 献

- 1) Sakakibara R, Hattori T, Yasuda K, et al. Micturition disturbance and the pontine tegmental lesion: urodynamic and MRI analysis of vascular cases. *J Neurol Sci* 1996;141: 105-110.
- 2) Barington FJF. The effect of lesions of the hind-and mid-brain on micturition in the cat. *Exp Physiol* 1925;15:81-102.
- 3) Fowler CJ, Griffiths D, et al. The neural control of mic-

- turation. *Nature Reviews Neuroscience* 2008;9:453-466.
- 4) Nedeltchev K, Baumgartner RW. Traumatic cervical artery dissection. *Front Neurol Neurosci* 2005;20:54-63.
 - 5) Micheli S, Paciaroni M, Corea F, et al. Cervical artery dissection: emerging risk factors. *Open Neurol J* 2010;4:50-55.
 - 6) Artto V, Metso TM, Metso AJ, et al. Migraine with aura is a risk factor for cervical artery dissection: a case-control study. *Cerebrovasc Dis* 2010;30:36-40.
 - 7) Olin JW, Sealove BA. Diagnosis, management, and future developments of fibromuscular dysplasia. *J Vasc Surg* 2011;53:826-836.
 - 8) Kim JS, Lee JH, Choi CG, et al. Patterns of lateral medullary infarction: vascular lesion-magnetic resonance imaging correlation of 34 cases. *Stroke* 1998;29:645-652.
 - 9) 榎原隆次, 服部孝道, 東條雅季ら. 脳幹梗塞における排尿障害の研究. *自律神経* 1993;30:404-410.
 - 10) 永沼雅基, 稲富雄一郎, 米原敏郎ら. 一側性延髄外側梗塞にともない閉塞性神経因性膀胱をきたした1例. *臨床神経* 2005;45:431-436.
 - 11) 高橋俊博, 金谷潔史, 石堂哲郎ら. 延髄外側梗塞 (ワレンベルク症候群) に併発した神経因性膀胱の一例. *日神学会誌* 1995;6:3-7.
 - 12) 斎藤 博. 排尿障害を伴った延髄外側梗塞例にみられた同側性 hyperreflexic sweating. *自律神経* 1986;23:410-416.
 - 13) 菅谷公男, 森 茂美, 土田正義. 橋排尿中枢における入出力神経構築の同定第2報. *日泌尿会誌* 1988;79:872-874.
 - 14) 松崎 章. 除脳ネコの橋における蓄尿機構に関する研究. *日泌尿会誌* 1990;81:672-679.
 - 15) 小浜丈夫. ネコの橋内蓄尿促進部位に関する神経解剖学的研究第2報. *日泌尿会誌* 1992;83:1478-1483.
 - 16) 谷川明代, 小宮山純, 青葉重光ら. 多発性硬化症患者にみられた橋被蓋病変による排尿筋括約筋協調不全. *神経内科* 1996;44:197-199.

Abstract

A case of lateral medullary syndrome with neurogenic bladder

Shin-ichi Tokushige, M.D.¹⁾, Risa Maekawa, M.D.¹⁾, Yorito Nose, M.D.²⁾ and Yasushi Shio, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Tokyo Teishin Hospital

²⁾Department of Urology, Tokyo Teishin Hospital

Case Report: A 45-year-old man came to our hospital with a chief complaint of occipital pain followed by gait disturbance and developing hypohidrosis on the right side 6 days after the onset. Brain MRI revealed an acute infarction in the dorsolateral part of right medulla. Bladder catheter was inserted because of dysuria. 8 days after the onset, the bladder contraction and desire to urinate were normal, by cystometry. However, micturition was still impossible without a catheter. His dysuria was considered to be due to Detrusor-Sphincter Dyssynergia (DSD). 19 days after the onset, he was able to urinate without a catheter. We found only 5 reported cases of lateral medullary infarction with dysuria, all of which had abnormal bladder contraction. This is the first case report of lateral medullary infarction with dysuria in spite of normal bladder contraction.

(*Clin Neurol* 2012;52:79-83)

Key words: neurogenic bladder, Detrusor-Sphincter Dyssynergia (DSD), lateral medullary syndrome, cystometry