

症例報告

18 椎体レベルにわたり広がった非外傷性脊髄内出血の 1 例

鈴木 将史^{1)2)*} 安藤 哲朗¹⁾ 川上 治¹⁾
 杉浦 真¹⁾ 加藤 博子¹⁾ 稲垣 智則¹⁾

要旨：症例は 48 歳男性である。弁置換術後よりワルファリンとアスピリンの内服が開始された。その約 1 ヶ月後、左腋窩から左側腹部にかけての異常感覚と両側前腕橈側の疼痛が出現した。発症後 2 週間の経過で疼痛の部位が両側前腕から両肩と背部に移動し、続いて後頸部へと移動した。その間に対麻痺や感覚障害、膀胱直腸障害などの神経症候が悪化した。疼痛の消失と共に神経症候の悪化も停止した。脊髄 MRI では C1 から T11 レベルにわたる広範囲な脊髄内出血をみとめた。18 椎体レベルにわたる脊髄内出血の症例報告は少なく、その経過、画像所見を報告するとともに、脊髄鉛筆状軟化との病態の類似性について考察する。

(臨床神経 2013;53:536-542)

Key words：脊髄内出血、脊髄、出血、抗血栓療法、脊髄鉛筆状軟化

はじめに

非外傷性の脊髄内出血はまれな病態であり、その発症経過は急性発症から慢性進行性のものまで様々である。原因としては海綿状血管奇形や動静脈奇形にともなうものが多いとされる。その他の原因としては脊髄腫瘍、ワルファリンやヘパリンなどの抗血栓薬の使用、血液疾患にともなう凝固異常、放射線照射後の合併症などが報告されている¹⁾。症候としては発症部位に応じた脊髄障害をおこし、しばしば背部や頸部の疼痛、あるいは神経根性疼痛をきたすとされる¹⁾²⁾。今回われわれは、ワルファリンとアスピリン内服中に生じた C1 から T11 レベルにおよぶ広範囲な脊髄内出血の症例を経験したので報告する。

症 例

症例：48 歳、男性

主訴：左腋窩から左側腹部のしびれ

既往歴：パニック障害、左失明（外傷後）、大動脈弁閉鎖不全症・大動脈基部拡張症術後。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2012 年 3 月下旬に大動脈弁閉鎖不全症、大動脈基部拡張症に対しベントール術がおこなわれ、術後よりワルファリンとアスピリンの内服が開始された。2012 年 4 月中旬（第 0 病日）より左腋窩から左側腹部にかけてしびれるような異常感覚と、両側前腕橈側に疼痛が出現した。第 3 病日神経内科を受診し、この時点で異常感覚は左腋窩から左大腿

前面に拡大していた（Fig. 1）。異常感覚の訴えに加え、診察では胸部以下の右半身の痛覚鈍麻と左側の腱反射亢進をみとめた。他覚的な運動障害はみとめなかった。一週間後に頸髄 MRI が予定されたが、第 5 病日には排尿のしにくさを自覚し、左下肢の動かしにくさも出現した。第 6 病日には疼痛が背部と両肩に移動した。第 7 病日より自排尿が困難となり、排便障害も出現した。同日に泌尿器科を受診し、尿道留置カテーテルが挿入された。第 10 病日の頸髄 MRI で髄内信号変化をみとめ、左下肢の筋力低下もみとめたため入院となった。

入院時現症：一般身体所見は身長 168.5 cm、体重 55.6 kg、体温 36.5°C、血圧 132/81 mmHg、脈拍 76 回/分・整、SpO₂ 98%（room air）、胸部に手術痕をみとめ、その他胸腹部には異常をみとめなかった。神経学的所見としては、意識清明で GCS 15 点（E4V5M6）、左眼は外傷後のため失明、対光反射が消失していた。その他の脳神経には異常をみとめなかった。筋力は左下肢近位部で MMT4 と筋力低下をみとめた。感覚系では頸部と上腹部に帯状の全感覚消失をみとめ、それ以外の頸部以下には温痛覚鈍麻をみとめた。温痛覚鈍麻の程度は右下半身が 1/10 ともっとも高度で、続いて左下半身が 2/10、上半身が 3/10 だった。また後頸部にじっとしていられないような激しい疼痛を訴えていた。しびれるような異常感覚は左腋窩から左下肢全体に拡大していた。小脳系には異常をみとめなかった。腱反射は両側全般に亢進していたが、バビンスキー徴候は陰性だった。

検査所見：一般生化学検査では TP 8.7 g/dl、ALB 5.2 g/dl、LDH 242 IU/l、ALP 458 IU/l、CRP 1.48 mg/dl と上昇していた。AST 20 IU/l、ALT 21 IU/l、Cre 1.05 mg/dl は正常範囲だった。血算では WBC $1.3 \times 10^4/\mu\text{l}$ と上昇していたが、RBC $482 \times 10^4/\mu\text{l}$ 、

*Corresponding author: 豊橋市民病院神経内科〔〒 441-8570 愛知県豊橋市青竹町字八間西 50 番地〕

¹⁾ JA 愛知厚生連安城更生病院神経内科

²⁾ 現：豊橋市民病院神経内科

（受付日：2012 年 11 月 26 日）

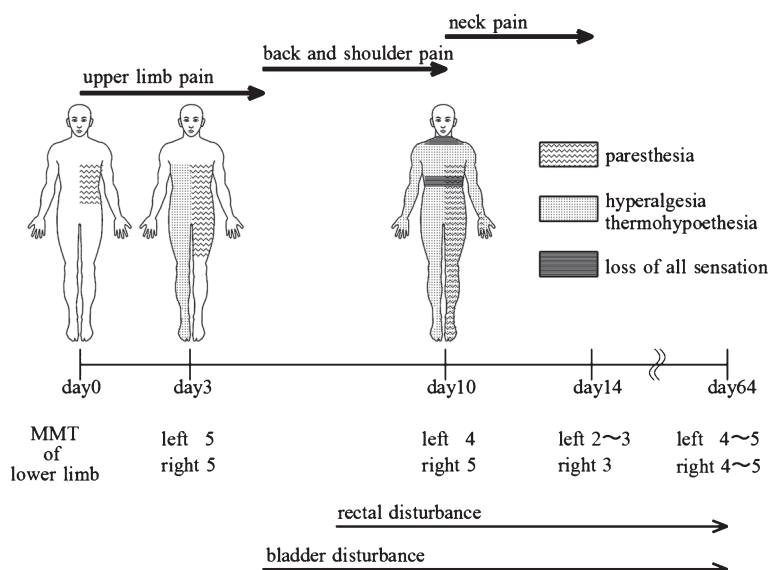


Fig. 1 The patient's clinical course.

Upper limb pain and dysesthesia from left axilla to left femur occurred on day 0. Paraplegia, sensory disturbance, bladder and rectal disturbance developed gradually over two weeks, accompanied by severe pain. The location of pain moved from upper limb to back and shoulder, and finally to neck. The pain disappeared on day 14, and progression of neurological symptoms stopped. Paraplegia improved but other neurological symptoms did not improve.

Hb 14.4g/dl, Ht 42.6%, PLT $32.5 \times 10^4/\mu\text{l}$ には異常をみとめなかった。凝固系では PT-INR 1.88, APTT 36.1 秒(対照 27.2 秒)と延長をみとめた。各種抗核抗体、抗カルジオリビン抗体、ANCA、HTLV-I 抗体、ACE に異常をみとめなかった。

頸髄 MRI の T_1 強調画像では C3 から下位の脊髄が腫大し、脊髄内に正常脊髄と比較し軽度の高信号変化をみとめた (Fig. 2A)。 T_2 強調画像では同部位は高信号を示していたが、C7/T1 レベルには低信号域と高信号域が混在した部位をみとめた (Fig. 2B)。 T_2^* 強調画像では髄内に低信号病変をみとめた (Fig. 2C)。 また Gd 造影 T_1 強調画像では C7/T1 レベルに軽度の造影効果をみとめたが、あきらかな腫瘍性病変は指摘できなかった (Fig. 2D)。 頭部 MRI, MRA 検査ではあきらかな異常をみとめなかった。

経過: T_2^* 強調画像の信号変化より、本症例は脊髄内出血と診断した。白血球数と CRP 値の増加に関しては、広範囲な出血にともなう反応性変化と考えた。出血点は断定できないが、C7/T1 レベルに T_2 強調画像で低信号域と高信号領域が混在し軽度の造影効果をみとめること、臨床所見として異常感覚が左腋窩から拡大していることをふくめて、C7/T1 レベルもしくはこの周辺が出血点であった可能性が高いと考えた。出血が広範囲であり外科的治療は困難と判断された。短期間の抗血栓薬中止が必要と考え、入院日(第 10 病日)にアスピリンとワルファリンの内服中止、およびビタミン K_2 静注によるワルファリンの拮抗をおこなった。第 10 病日から第 14 病日まで後頸部の疼痛が持続した。また左下肢と体幹の筋力低下が進行し、右下肢近位部にも筋力低下が拡大した。第 14 病日には右下肢近位部 MMT3, 左下肢は MMT2~3 と

なった。第 14 病日の血液検査では WBC $12,200/\mu\text{l}$, CRP 0.38 mg/dl と低下を示していた。凝固系は PT-INR 1.07, APTT 27.1 秒(対照 27.2 秒)で正常範囲だった。第 15 病日には後頸部の疼痛が消失し、筋力低下の進行が停止した。その後筋力低下は徐々に改善に向かった。第 20 病日におこなった胸髄 MRI の T_2^* 強調画像では髄内出血の下端が T11 まで連続していることが判明した (Fig. 3C)。 T_1 強調画像と T_2 強調画像は共に高信号を示していることから、亜急性期の出血をみていると考えられた (Fig. 3A, B)。第 31 病日に頸髄 MRI をおこなったところ、脊髄内出血の上端は入院時の C3 レベルから C1 レベルまで上行していたが、浮腫性の信号変化や脊髄腫大は改善していた (Fig. 4)。その後も神経症状の悪化はなく経過したために、第 35 病日にアスピリンとワルファリンの内服を再開した。第 51 病日の頸髄 MRI, 第 56 病日の胸髄 MRI で出血の拡大はみとめなかった (Fig. 5)。 T_2^* 強調画像で出血は C1 から T11 レベルまで連続し広がっていることが判明した (Fig. 5B, D)。 T_2 強調画像の横断像では、出血が脊髄中央よりやや左側を中心に細長く伸び、複数の部位で幅が広がり空洞を形成していることが判明した (Fig. 5A, C, E)。下肢の筋力は MMT4~5 まで改善したものの、異常感覚と感覚障害、膀胱直腸障害は改善をみとめなかった。第 64 病日にリハビリテーション継続目的に転院となった。

考 察

非外傷性脊髄内出血の原因としては、海綿状血管奇形や動静脈奇形による報告例がもっとも多い。抗血栓薬使用にとも

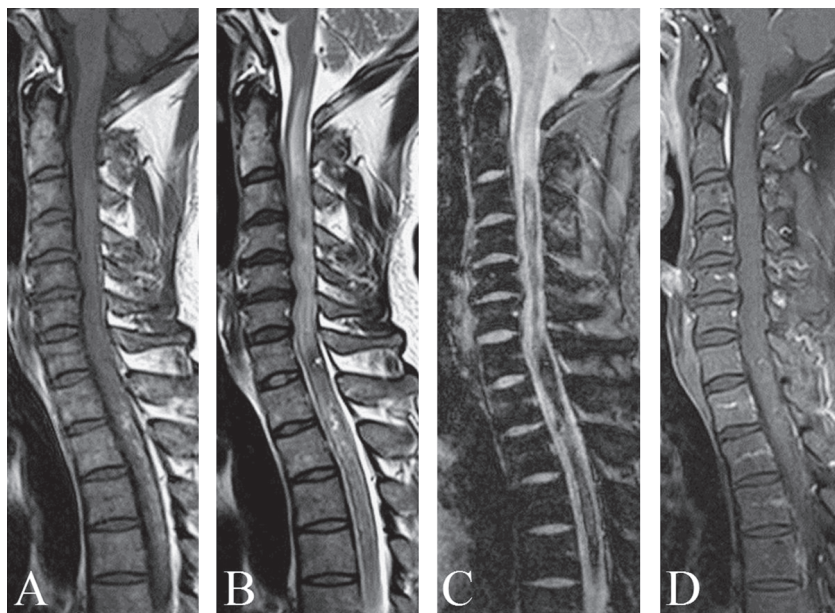


Fig. 2 MRI of the cervical spinal cord on day 10.

(A) T_1 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 509 ms, TE 12.0 ms) shows swelling of the spinal cord, and a high-intensity area at the C3 level and below. (B) T_2 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 3,000 ms, TE 91.0 ms) shows a high-intensity area at the C1 level and below, and a partially low-intensity area at the C7/T1 level. (C) T_2^* -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 467 ms, TE 17.6 ms) shows a low-intensity area at the C3 level and below. (D) Gadolinium-enhanced T_1 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 400 ms, TE 9.9 ms) shows an enhanced lesion at the C7/T1 level.

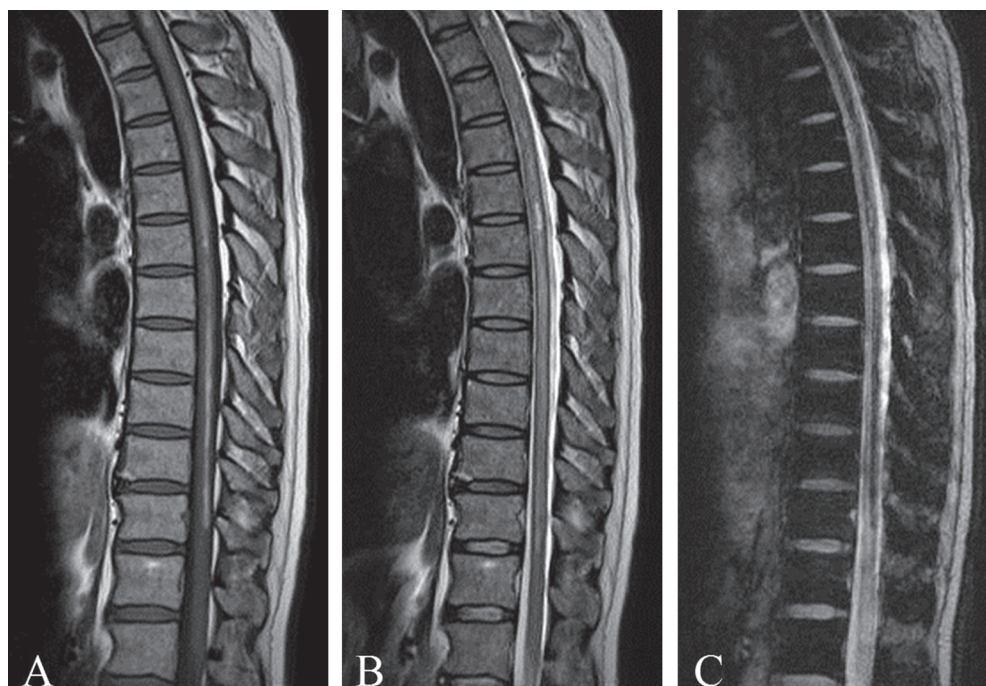


Fig. 3 MRI of the thoracic spinal cord on day 20.

(A) T_1 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 553 ms, TE 10.0 ms) shows a high-intensity area at T11 level and above. (B) T_2 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 3,580 ms, TE 88.0 ms) shows a high-intensity area at T11 level and above. (C) T_2^* -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 345 ms, TE 24.0 ms) shows a low-intensity area at T11 level and above.

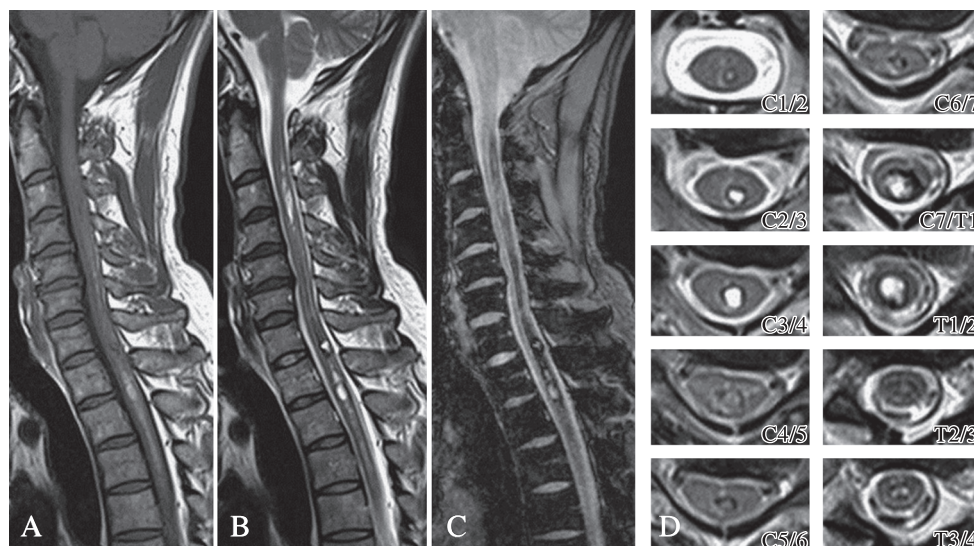


Fig. 4 MRI of the cervical spinal cord on day 31.

(A) T_1 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 573 ms, TE 12.0 ms). (B) T_2 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 3,190 ms, TE 91.0 ms). (C) T_2^* -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 400 ms, TE 17.6 ms). (D) T_2 -weighted MR image (Axial, 1.5 T; TR 4,870 ms, TE 112.0 ms). Fig. 4 (A, B) shows the swelling of the spinal cord is improving. Fig. 4 (B, D) shows the hemorrhage extending longitudinally in the spinal cord, changing in width. Fig. 4 (C) shows that the upper end of the hematoma have moved to the C1 level.

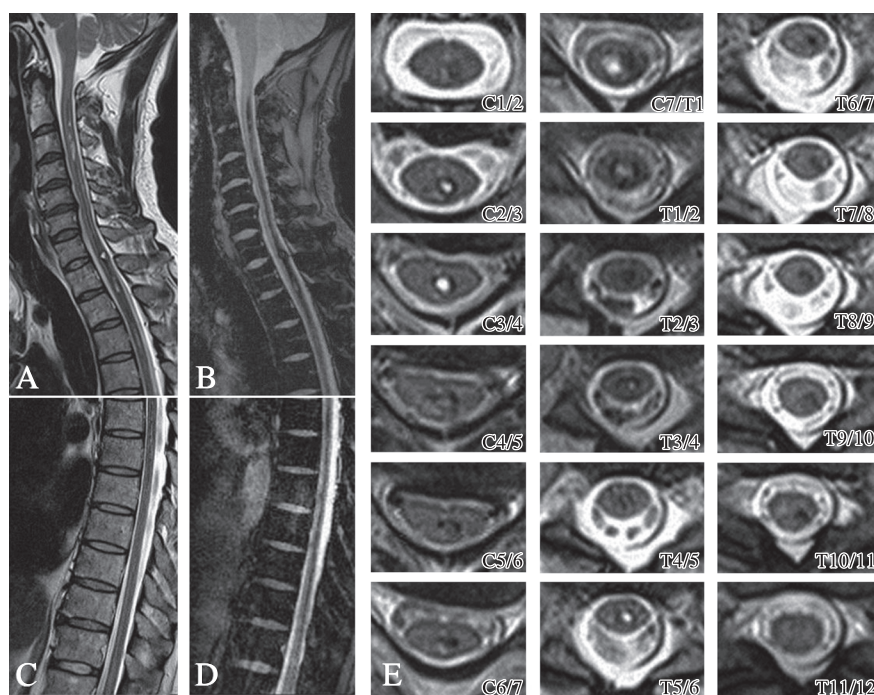


Fig. 5 MRI of the cervical spinal cord on day 51 and MRI of the thoracic spinal cord on day 56.

(A) T_2 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 3,000 ms, TE 91.0 ms) on day 51. (B) T_2^* -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 467 ms, TE 17.6 ms) on day 51. (C) T_2 -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 3,980 ms, TE 84.0 ms) on day 56. (D) T_2^* -weighted MR image (Sagittal, 1.5 T; TR 465 ms, TE 17.5 ms) on day 56. (E) C1/2–T3/4 T_2 -weighted MR image (Axial, 1.5 T; TR 4,870 ms, TE 112.0 ms) on day 51. (E) T4/5–T11/12 T_2 -weighted MR image (Axial, 1.5 T; TR 3,340 ms, TE 81.0 ms) on day 56. Fig. 5 (B, D) shows the hemorrhage is extending from the C1 to T11 segments of the spinal cord. Fig. 5 (A, C, E) shows the hemorrhage mainly in the left side of the posterior column.

Table 1 Cases reports of hematomyelia associated with antithrombotic therapy.

Case	Age	Sex	Antithrombotic drug	Laboratory test	Lesion	Symptoms
Kawakami 1973 ³⁾	68	M	anticoagulant	PT 50 sec	C3 to T10	pain in the shoulders, quadriplegia
Friedland 1982 ⁴⁾	68	F	warfarin	PT 27 sec (control 11 sec)	T6 to T12	weakness and sensory disturbance in the right leg urinary disturbance
Pisani 1985 ⁵⁾	59	M	warfarin	PT 20% to 40%	T11 to L2	pain in the right leg, hyperesthesia in the right leg
Constantini 1992 ⁶⁾	60	M	warfarin	PT 30%	T9 to T10	low back pain, weakness in the left leg urinary disturbance
Zeidman 1993 ⁷⁾	81	M	warfarin	PT 20.4 sec (1.7 times of control)	cervical cord	deep neck pain, throat pain, numbness in the right arm and leg, urinary disturbance
Liebeschuetz 1994 ⁸⁾	57	F	warfarin	PT-INR 4.5	thoracic cord	frontal headache, neck pain, upper back pain restlessness in the right leg
Greaves 1997 ⁹⁾	66	F	heparin	APTT 36 sec	conus medullaris	numbness and weakness of the right leg
Pullarkat 2000 ¹⁰⁾	62	M	warfarin	PT-INR 4.6	C3 to C6	left-sided neck pain, left shoulder pain, left hemiplegia
Cakirer 2001 ¹¹⁾	4	M	warfarin	PT 23 sec (control 12–14 sec)	C1 to T1	quadriplegia, urinary disturbance
Robbins 2007 ¹²⁾	68	M	warfarin	PT-INR 7.1	cervical cord	quadriplegia
Ito 2010 ²⁾	76	M	warfarin	—	cervical cord	right hemiplegia
Suzuki (present case)	48	M	warfarin, aspirin	PT-INR 1.88	C1 to T11	upper limb pain, back pain, neck pain, paraplegia sensory disturbance, bladder and rectal disturbance

なう脊髄内出血の報告例は少なく、検索しえた 11 例^{2)~12)}を Table 1 に示した。頸部、肩、背部などの疼痛で発症している症例が多く、抗血栓薬の内服患者が突然の痛みと共に脊髄障害を発症した際には、脊髄内出血の可能性を考慮する必要がある。ワルファリンに関しては、その効果が治療域にあって出血をおこした例が報告されている。本症例ではワルファリンに加え、アスピリンを併用していたことがさらに出血を助長したと考えられる。本症例は抗血栓薬使用に関連して発症した脊髄内出血であるが、もともと存在していた海綿状血管奇形から出血し、ワルファリンとアスピリンの影響によって出血が持続し、約 2 週間にわたり症状が進行した可能性も考慮される。本症例の経験から、抗血栓薬使用中に脊髄内出血がおきたばあいには、早期に抗血栓薬を中止し、ワルファリンのばあいには拮抗薬を使用して出血の増大を防ぐ必要があると考えられる。

本症例において左腋窩から左側腹部の異常感覚で発症して、約 2 週間の経過で疼痛部位が両側前腕橈側から、両肩と背部、ついで後頸部へと移動し、それにとまって脊髄症候が悪化したのは、脊髄のある 1 ヲ所から出血がおこり、血腫が脊髄内を上下に伸びていったことによると推定される。文献的に脊髄内出血では長軸に沿って上下に血腫が伸展しやすく¹³⁾、脊髄内の出血は中央より片側に存在することが多いことが報告されている²⁾。本症例で血腫は主に脊髄中央より左側を中心に広がったために、運動障害は左半身に優位で、感覚障害は右半身優位の温痛覚障害を呈したと考えられる。前腕、肩の疼痛が両側性に出現したことに関しては、血腫の進展に加え血腫周囲の炎症や浮腫性変化が、両側の脊髄後角もしくは後根に影響をおよぼした可能性が考えられる。

脊髄内出血の診断に関しては MRI 検査における T₂* 強調画像が有用で、これにより診断を確定することができた。一

方で T₂* 強調画像では病変が過大に描出されていると考えられ、出血の空間的広がりや浮腫性の信号変化の評価には T₂ 強調画像や T₁ 強調画像が有用であると考えられた。治療に関しては、外科的治療が可能ならば血腫除去をおこなった報告が多いが、治療の効果や血腫除去をおこなう時期について一定の見解は示されていない。緩徐進行性の症例では急性発症例と比較して予後が良いという報告もあり¹⁴⁾、神経症候の程度や経過、出血の原因、画像所見をふくめて治療方法を検討する必要がある。本症例のように抗凝固療法がおこなわれているばあいには、拮抗することが推奨されている¹⁰⁾。

本症例において頸胸椎移行部におこった脊髄内出血が長軸に沿って上下に広がったことは、脊髄鉛筆状軟化 (pencil-shaped softening of the spinal cord) の病態と類似している。脊髄鉛筆状軟化は、脊髄の中央部に数髄節あるいはそれ以上にわたって境界明瞭な壊死巣が円柱状に形成される特徴的な病変で、脊髄を鉛筆に見立てると壊死巣が鉛筆の芯のようにみえる。脊髄外傷や転移性硬膜外腫瘍などにより横断性壊死がおこった際、圧迫や脊髄浮腫により脊髄内圧が亢進して壊死組織が後索、後角内を尾側、吻側方向に押し出されて行くことにより形成されることが考えられている¹⁵⁾。脊髄鉛筆状軟化の臨床像は、横断性の壊死をおこす主病変の発症から数時間から数日遅れて障害レベルが亜急性に上行する。このときに疼痛をとまなうことが多い¹⁵⁾。本症例も疼痛をとまなう障害レベルの上昇が上行しており、血腫が上方に押し出されていくときにおこった症候と考えられる。脊髄内出血のばあい血腫で脊髄鉛筆状軟化のばあいは壊死組織であり、押し出される組織はことなるが、脊髄内に横方向に広がれないために上下に押し出される点で病態の類似がある。さらにいえば脊髄空洞症において髄液が上下に押し出されて空洞が広がっていく病態とも類似しており、これらは脊髄組織が上下方向

に裂けやすいという構造上の特性を示すものと考えられる。

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

文 献

- 1) Leep Hunderfund AN, Wijdicks EFM. Intramedullary spinal cord hemorrhage (hematomyelia). *Rev Neurol Dis* 2009;6: E54-E61.
- 2) 伊藤拓緯, 平野 徹, 和泉智博ら. 脊髄内血腫症例の検討. *新潟医師会報* 2010;722:2-5.
- 3) Kawakami Y, Mair WG. Haematomyelia associated with anticoagulant therapy, an intramedullary ependymoma and Schwann cells. *Acta Neuropathol* 1973;26:253-258.
- 4) Friedland ML, Wittels EG. Spinal cord haemorrhage following herpes zoster: a possible complication of warfarin therapy. *Postgrad Med J* 1982;58:39-40.
- 5) Pisani R, Carta F, Guiducci G, et al. Hematomyelia during anticoagulant therapy. *Surg Neurol* 1985;24:578-580.
- 6) Constantini S, Ashkenazi E, Shoshan Y, et al. Thoracic hematomyelia secondary to coumadin anticoagulant therapy: a case report. *Eur Neurol* 1992;32:109-111.
- 7) Zeidman SM, Olivi A. Cervical intramedullary hemorrhage as a result of anticoagulant therapy. *J Spinal Disord* 1993;6:456-457; discussion 457-458.
- 8) Liebeschuetz S, Baddeley H, Thomas DJ. Haematomyelia following warfarin therapy. *Br J Clin Pract* 1994;48:105-106.
- 9) Greaves JD. Serious spinal cord injury due to haematomyelia caused by spinal anaesthesia in a patient treated with low-dose heparin. *Anaesthesia* 1997;52:150-154.
- 10) Pullarkat VA, Kalapura T, Pincus M, et al. Intraspinal hemorrhage complicating oral anticoagulant therapy: an unusual case of cervical hematomyelia and a review of the literature. *Arch Intern Med* 2000;160:237-240.
- 11) Cakirer S, Basak M, Galip GM. Cervical hematomyelia secondary to oral anticoagulant therapy: case report. *Neuroradiology* 2001;43:1087-1088.
- 12) Robbins M, Verghese J. Acute painless progressive quadriplegia associated with warfarin use. *J Am Geriatr Soc* 2007;55:799-800.
- 13) Leech RW, Pitha JV, Brumback RA. Spontaneous haematomyelia: a necropsy study. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1991;54:172-174.
- 14) Matsumura A, Ayuzawa S, Doi M, et al. Chronic progressive hematomyelia: case reports and review of the literature. *Surg Neurol* 1999;51:559-563.
- 15) 安藤哲朗, 橋詰良夫. 脊髄鉛筆状軟化. *Clinical Neurosci* 2012;30:1164-1167.

Abstract**A case of atraumatic hematomyelia extending from the C1 to T11 segments of the spinal cord**

Masashi Suzuki, M.D.¹⁾²⁾, Tetsuo Ando, M.D.¹⁾, Osamu Kawakami, M.D.¹⁾,
Makoto Sugiura, M.D.¹⁾, Hiroko Kato, M.D.¹⁾ and Tomonori Inagaki, M.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Anjo Kosei Hospital

²⁾Present address: Department of Neurology, Toyohashi Municipal Hospital

Intramedullary spinal cord hemorrhage (hematomyelia) is rare and usually related to trauma. Spinal vascular malformations such as intramedullary cavernomas and intradural arteriovenous malformations are the most common cause of atraumatic hematomyelia. Other considerations include warfarin or heparin anticoagulation, bleeding disorders, spinal cord tumors, and delayed complication of spinal radiation. We report the case of 48-year-old man receiving warfarin and aspirin therapy, who showed upper limb pain and dysesthesia from left axilla to left femur. Paraplegia, sensory disturbance, bladder and rectal disturbance developed gradually over two weeks, accompanied by severe back and neck pain. MRI showed hematomyelia extending from the C1 to T11 segments of the spinal cord. The hemorrhage was located mainly in the left side of the posterior column. Few cases of hematomyelia extending over 18 segments of the spinal cord have been reported. Past literature reports of hematomyelia tend to extend longitudinally above and below the area of initial hemorrhage. We thought that the shape of this hematomyelia extending longitudinally over several segments was formed by a similar pathogenesis to pencil-shaped softening of the spinal cord.

(Clin Neurol 2013;53:536-542)

Key words: hematomyelia, spinal cord, hemorrhage, antithrombotic therapy, pencil-shaped softening of the spinal cord
