

開心術中の経食道心臓超音波検査により発症した Tapia 症候群の 1 例

藤原 悟¹⁾ 吉村 元^{1)*} 西矢 健太²⁾
大嶋 圭一³⁾ 川本 未知¹⁾ 幸原 伸夫¹⁾

要旨：症例は 67 歳男性。全身麻酔下での開心術後 1 日目の抜管直後より、嘔声、構音障害、舌の左側偏倚を認めた。頭部 MRI では原因病変を認めず、軟口蓋麻痺はなく、耳鼻科診察で左声帯不全麻痺を認めたため、Tapia 症候群（反回神経麻痺と舌下神経麻痺の合併）と診断した。神経症状は緩徐に改善し、発症 4 ヶ月後にはほぼ完全に回復した。Tapia 症候群は稀ではあるが、全身麻酔時の気管内挿管の合併症等として報告されている。本例では左口角から挿入していた経食道超音波のプローブが左咽頭後壁を圧迫したことが原因と考えられた。本例は術中の経食道心臓超音波検査によって生じた Tapia 症候群の初めての報告である。

（臨床神経 2017;57:785-787）

Key words：Tapia 症候群，舌下神経麻痺，反回神経麻痺，経食道心臓超音波検査，圧迫性ニューロパチー

症 例

患者：67 歳，男性

主訴：構音障害，嘔声

既往歴：高血圧症，糖尿病，脂質異常症，下肢閉塞性動脈硬化症，慢性心不全，狭心症。

生活歴：喫煙は 2014 年 1 月まで 30 本/日 × 30 年間。アルコールは週 1 回，晩酌程度。

現病歴：2014 年 2 月上旬に呼吸困難を主訴に前医を受診，慢性心不全および心尖部の瘤化を認め，冠動脈造影で三枝病変を指摘された。その後当院心臓血管外科に紹介となり，同年 5 月下旬に，冠動脈バイパス術，僧帽弁形成術，Dor 手術を受けた。手術は全身麻酔，術中体位は仰臥位で，人工心肺装置を使用して心停止下に行われた。手術時間は 8 時間 18 分で，術中は気管内挿管チューブを右口角に固定し，左口角からは経食道超音波プローブを約 7 時間挿入して走査していた。手術は問題なく終了し，術後 1 日目に計画通りに抜管したが，その直後から構音障害，嘔声，舌の左側偏倚を認めた。症状が持続したため術後 4 日目に当科紹介となった。

診察時所見：身長 166 cm，体重 77.15 kg。意識は清明。脳神経系の診察では，眼球運動は正常で，顔面感覚の左右差はなく，顔面麻痺もなし。カーテン徴候は認めず，軟口蓋挙上，胸鎖乳突筋筋力，嚥下機能に問題はなかったが，舌音に強い構音障害，嘔声，挺舌時の左側偏倚，舌運動不良を認めた

（Fig. 1A）。四肢体幹の麻痺や表在覚および深部覚の異常，協調運動障害はいずれも認めず，深部腱反射は正常で，病的反射も認めなかった。

検査所見：術後 5 日目に撮影した頭部 MRI では，左海馬，右頭頂葉に点状の新規脳梗塞を認めたが，神経症状を説明しうる病変は認めなかった。咽喉頭ファイバーでは，軟口蓋麻痺はないが，左声帯の不全麻痺を認めた。一般血液検査（生化学・血球計算・凝固）では特記すべき異常所見を認めなかった。

経過：左反回神経麻痺と舌下神経麻痺の合併であることから，Tapia 症候群と診断した。メコバラミン 1,500 μg/ 日内服と言語リハビリテーションを行いながら経過観察したところ，神経症状は緩徐に改善し，発症 2 ヶ月後に舌左側の強い萎縮が出現したものの嘔声は消失し，発症 4 ヶ月後には挺舌も正中となった（Fig. 1B, C）。

考 察

Tapia 症候群は 1904 年に耳鼻咽喉科医師の Antonio Garcia Tapia が初めて報告した，咽頭後壁部での反回神経と舌下神経の障害により，両神経の麻痺を生じる症候群である¹⁾。二つの神経が中咽頭下部から下咽頭上部のレベルで並走しているため，咽頭後壁での機械的な圧迫等が両神経を同時に損傷して一過性麻痺を生じることが原因であり，このレベルで近接しない舌咽神経の障害を伴わないことが，頸静脈孔症候群と

*Corresponding author: 神戸市立医療センター中央市民病院〔〒 650-0047 兵庫県神戸市中央区港島南町 2-1-1〕

¹⁾ 神戸市立医療センター中央市民病院神経内科

²⁾ 神戸市立医療センター中央市民病院神経内科・心臓血管外科

³⁾ 神戸市立医療センター中央市民病院神経内科麻酔科

（Received September 8, 2017; Accepted October 16, 2017; Published online in J-STAGE on November 28, 2017）

doi: 10.5692/clinicalneurology-001097

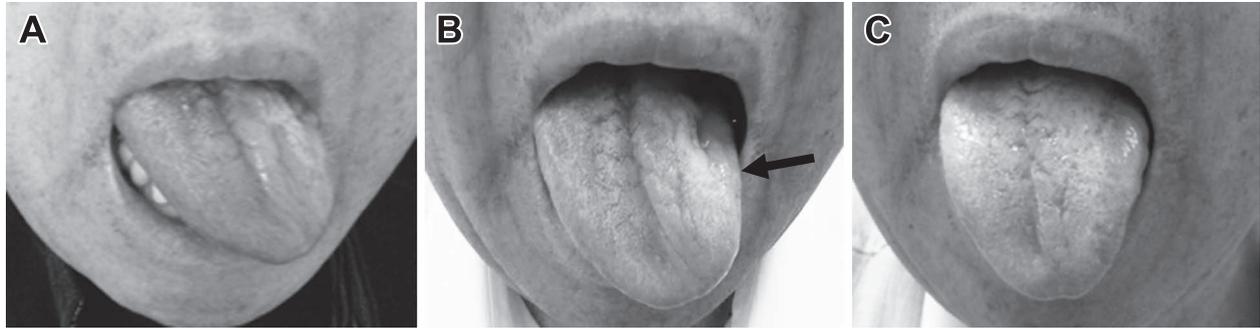


Fig. 1 Clinical course of the hypoglossal nerve palsy.

(A) Deviation of the tongue to the left side the day after operation. (B) After two months, the left lingual edge became atrophic (arrow). (C) The symptoms improved almost completely after four months.

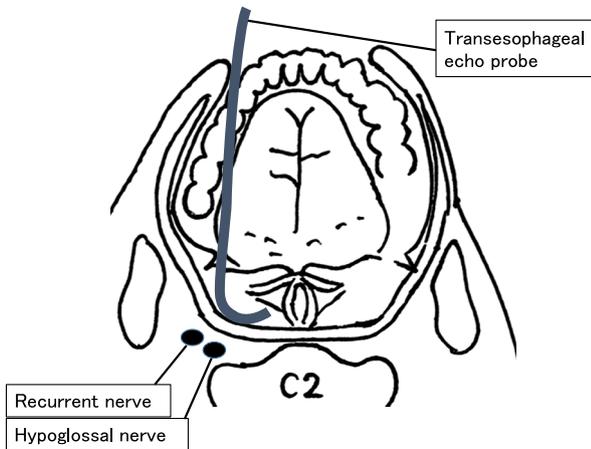


Fig. 2 Compression to the left recurrent and hypoglossal nerve through the pharynx by transesophageal echo probe.

の鑑別に重要となる。そのため咽喉頭ファイバーによる評価が正確な診断に重要である²⁾。稀な病態であるが、全身麻酔時の気管内挿管後の合併症としての報告が最も多く、それ以外には転移性血管肉腫³⁾や、真菌感染症⁴⁾、神経鞘腫⁵⁾による圧迫等が原因として挙げられている。これまでに報告されている24例のレビューによれば、16例が気管内挿管後の発症である。さらに、そのうち5例が術中に頭部の回旋を要する耳鼻咽喉科手術（鼻中隔形成、鼻形成術）に関連しており、他の4例では下咽頭へのガーゼ挿入も併用していたため、本症候群の発症には気管内挿管チューブだけではなく、術中の頭位や挿入物など他の要素もリスクになると考察されている⁶⁾。

本症例は全身麻酔下の開心術後に、構音障害、舌偏倚を生じた1例であり、動脈硬化のリスク因子や人工心肺装置の使用から、当初は周術期合併症として脳梗塞の可能性を考えた。しかし、頭部MRIでは塞栓症と考えられる2ヶ所の小梗塞を認めるものの、神経症状の説明はできなかった。一方、神経診察と咽喉頭ファイバーによる評価で、症状は左反回神経麻

痺と舌下神経麻痺の合併によるものと判断できたため、Tapia症候群の診断に至った。本症例では左側のTapia症候群を発症したが、気管内挿管チューブは右口角から右咽頭後壁を通過していたため、左口角から挿入して操作していた経食道超音波プローブが左咽頭後壁を圧迫して発症したものと考えられた（Fig. 2）。術中の経食道超音波プローブが原因となったTapia症候群は検索しうる限り、本例が最初の報告である。稀ではあるが、咽頭後壁の機械的な圧迫を伴う処置の合併症として知っておく必要があり、全身麻酔の手術後に舌偏倚や嘔声を生じた場合には本症候群を想起すべきである。

本報告の要旨は、第101回日本神経学会近畿地方会で発表し、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) Schoenberg BS, Massey EW. Tapia's syndrome. The erratic evolution of an eponym. *Arch Neurol* 1979;36:257-260.
- 2) Cariati P, Cabello A, Galvez PP, et al. Tapia's syndrome: pathogenetic mechanisms, diagnostic management, and proper treatment: a case series. *J Med Case Rep* 2016;10:23.
- 3) Krasnianski M, Neudecker S, Schluter A, et al. Central Tapia's syndrome ("matador's disease") caused by metastatic hemangiosarcoma. *Neurology* 2003;61:868-869.
- 4) de Freitas MR, Nascimento OJ, Chimelli L. Tapia's syndrome caused by *Paracoccidioides brasiliensis*. *J Neurol Sci* 1991;103:179-181.
- 5) Quattrocchio G, Giobbe D, Baggione P. Tapia's syndrome caused by a neurilemmoma of vagus and hypoglossal nerves in the neck. *Acta Neurol (Napoli)* 1986;8:535-540.
- 6) Gevorgyan A, Nedzelski JM. A late recognition of tapia syndrome: a case report and literature review. *Laryngoscope* 2013;123:2423-2427.

Abstract**Tapia's syndrome following transesophageal echocardiography during an open-heart operation: a case report**

Satoru Fujiwara, M.D.¹⁾, Hajime Yoshimura, M.D., Ph.D.¹⁾, Kenta Nishiya, M.D.²⁾, Keiichi Oshima, M.D.³⁾,
Michi Kawamoto, M.D.¹⁾ and Nobuo Kohara, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Kobe City Medical Center General Hospital

²⁾Cardiovascular Surgery, Kobe City Medical Center General Hospital

³⁾Anesthesiology, Kobe City Medical Center General Hospital

A 67-year-old man presented with hoarseness, dysarthria and deviation of the tongue to the left side the day after the open-heart operation under general anesthesia. Brain MRI demonstrated no causal lesion, and laryngoscope showed left vocal cord abductor palsy, so we diagnosed him with Tapia's syndrome (i.e., concomitant paralysis of the left recurrent and hypoglossal nerve). His neurological symptoms recovered gradually and improved completely four months after the onset. Tapia's syndrome is a rare condition caused by the extra cranial lesion of the recurrent laryngeal branch of the vagus nerve and the hypoglossal nerve, and mostly described as a complication of tracheal intubation. In this case, transesophageal echo probe has been held in the left side of the pharynx, so compression to the posterior wall of pharynx by the probe resulted in this condition, and to the best of our knowledge, this is the first report of Tapia's syndrome due to transesophageal echocardiography during an open-heart operation. This rare syndrome should be considered as a differential diagnosis of dysarthria and tongue deviation after a procedure associated with compression to the pharynx.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2017;57:785-787)

Key words: Tapia's syndrome, recurrent nerve palsy, hypoglossal nerve palsy, transesophageal echocardiography, compression neuropathy
