

腓腹筋の筋肥大をきたさず持続性高 CK 血症を呈した S1 神経根症の 1 例

中村 崇志¹⁾ 上野 達哉^{1)*} 新井 陽¹⁾
鈴木千恵子^{1,3)} 西野 一三²⁾ 富山 誠彦^{1,3)}

要旨：症例は間欠性跛行を主訴にした72歳男性。下腿三頭筋の筋肥大は全経過で明らかではなかった。Creatine kinase (CK) 1,525 U/l 以外は自己抗体等含め異常はなく、左腓腹筋の針筋電図検査で活動性神経原性変化を認めた。MRI では脊柱管狭窄と左 L4, 両側 S1 神経根圧迫があり、両側腓腹筋に T₂ 強調画像で高信号を認めた。右腓腹筋の筋病理では炎症細胞浸潤はなく、神経原性変化があり、高 CK 血症を伴う S1 神経根症、腰部脊柱管狭窄症と診断した。S1 神経根症に伴う高 CK 血症では腓腹筋の筋肥大を伴った報告が多いが、間欠性跛行を伴う高 CK 血症では下腿の筋肥大がなくても S1 神経根症の可能性を考える必要がある。

(臨床神経 2019;59:592-595)

Key words：S1 神経根症、腰部脊柱管狭窄症、腓腹筋肥大、高 CK 血症、骨格筋 MRI

はじめに

S1 神経根症による筋肥大や高 Creatine kinase (CK) 血症をきたす症例が報告されており¹⁾、診断には骨格筋・脊椎 MRI や筋生検が有用である²⁾。今回われわれは、S1 神経根症で持続的高 CK 血症を示したが筋肥大をきたさなかった症例を経験したため報告する。

症 例

患者：72 歳、男性

主訴：歩行障害

既往歴：心房細動、頸椎椎弓形成術後。

内服薬：テルミサルタン 40 mg/ アムロジピンベシル酸塩 5 mg 配合薬 1 錠/日、ラベプラゾールナトリウム 10 mg 1 錠/日、ビソプロロールフマル酸塩 2.5 mg 1 錠/日、ダビガトラン 75 mg 4 錠/日。

家族歴、生活歴：特記事項なし。

現病歴：2011 年に心房細動に対してカテーテルアブレーションを施行した際 800 U/l 前後の高 CK 血症が指摘されていたが活動量が高いためと判断されていた。2014 年に 300 m 歩行で間欠性跛行を自覚、2016 年に 100 m 歩行での間欠性跛

行を生じた。2017 年、頸椎症精査の際に高 CK 血症を指摘され当科紹介。

入院時現症：身長 178 cm、体重 74 kg。血圧 116/83 mmHg、心拍数 78/分・不整、体温 37.1℃、SpO₂ 97% (room air)。一般理学的所見では、皮疹を認めず、両側足背動脈は触知良好だった。

入院時神経学的所見：意識は清明で脳神経系に異常を認めなかった。運動系では筋トーンスは正常で、肉眼的な下腿三頭筋の肥大は認めず把握痛も無かった。下肢の徒手筋力検査は腸腰筋 (右/左 = 5/5)、大腿四頭筋 (5/5)、ハムストリングス (5/5)、前脛骨筋 (5-/5-)、腓腹筋 (4/4) の下肢遠位筋の筋力低下を認め、両側つま先立ちは不可能だった。感覚系は膝窩で触覚の低下、左膝窩で pin prick 低下、関節位置覚は四肢で正常で、振動覚は右内踝 10 秒/左内踝 8 秒だった。腱反射は上肢では軽度亢進、両側膝蓋腱反射は正常、両側アキレス腱反射は消失していた。協調運動、自律神経系に異常を認めず、歩行は開脚歩行で Romberg 徴候陰性。下肢伸展挙上テスト、大腿神経伸展テストは陰性で Kemp 徴候も認めなかった。

入院時検査所見：入院時血液検査では CK 1,525 U/l (62~287 U/l)、CPK アイソザイム BB 0%、MB 3%、MM 91%、AST 40 IU/l、ALT 26 IU/l、LDH 370 IU/l、ALP 186 IU/l、ミオ

*Corresponding author: 青森県立中央病院脳神経内科 [〒 030-0966 青森県青森市東造道 2-1-1]

¹⁾ 青森県立中央病院脳神経内科

²⁾ 国立精神・神経医療研究センター神経研究所疾病研究第一部

³⁾ 現：弘前大学大学院医学研究科脳神経内科学講座

(Received February 12, 2019; Accepted June 13, 2019; Published online in J-STAGE on August 30, 2019)

doi: 10.5692/clinicalneurology-001281

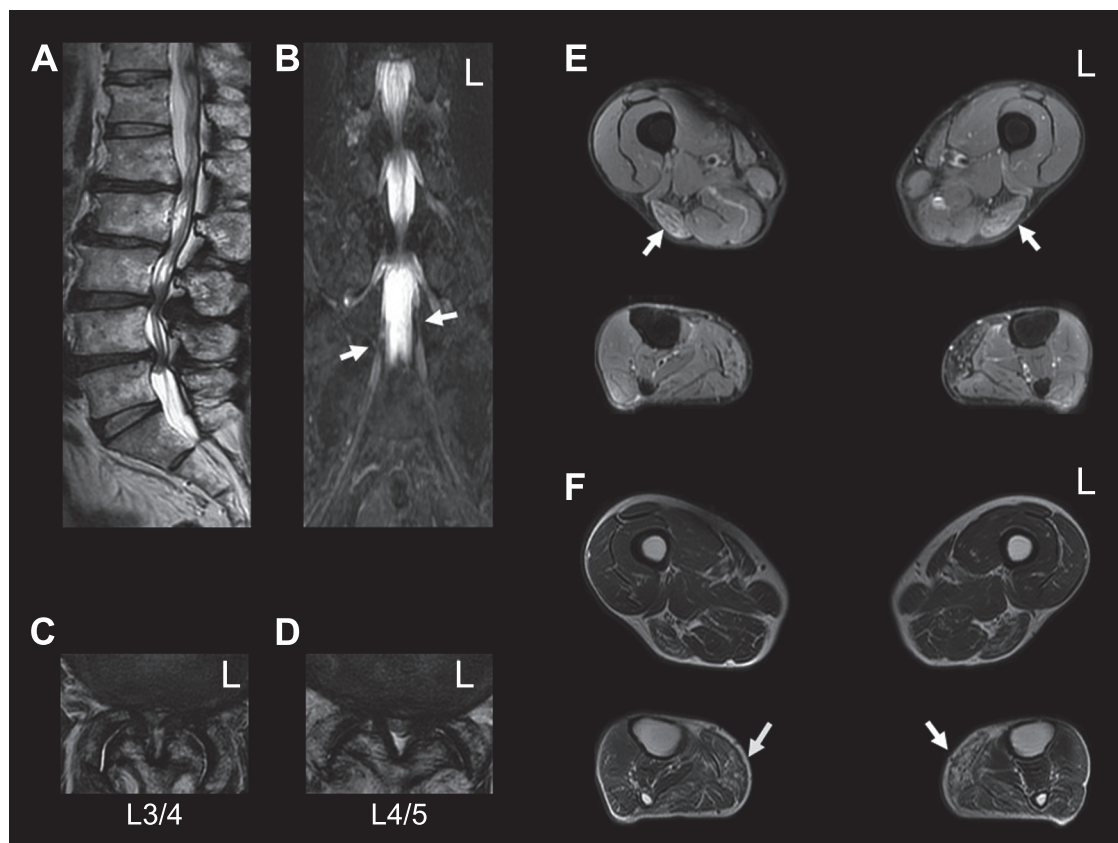


Fig. 1 Lumbar spinal MRI, MR neurography, and muscle MRI.

(A, C, D) T₂-weighted sagittal and axial images show spinal canal stenosis at L3/4 and L4/5 [3.0 T; repetition time (TR) 2,196 ms; echo time (TE) 107 ms]. (B) MR neurography shows compression of the bilateral S1 roots (arrows) (3.0 T; TR 5,890 ms; TE 141 ms). (E) Axial short-tau inversion recovery image shows increased signal intensity in biceps femoris (arrows) (3.0 T; TR 5,447 ms; TE 7 ms). (F) T₂-weighted axial image shows high signal intensity in the gastrocnemius (arrows) (3.0 T; TR 3,500 ms; TE 99 ms). L, left.

グロビン 339 ng/ml, fT3 3.2 pg/dl, fT4 1.32 ng/dl, TSH 1.13 µg/ml, と CK を除き異常は明らかではなかった。自己免疫性筋炎関連抗体は陰性だった。腰椎 MRI では L3/4, L4/5 で高度な脊柱管狭窄があり、馬尾弛緩を伴っていた (Fig. 1A, C, D)。MR neurography では左 L4 神経根と両側 S1 神経根の圧排を認めた (Fig. 1D)。下肢骨格筋 MRI では大腿二頭筋に局限した STIR 高信号、腓腹筋に T₂WI で高信号を認め (Fig. 1E, F)、細胞外水分量の増加を反映し、筋細胞の変性が示唆された。画像上明らかな筋萎縮・肥大も見られなかった。神経伝導検査では脛骨/腓骨神経での軽度の振幅低下及び伝導速度低下を示し、F 波最短潜時の延長が見られた。左外側腓腹筋の針筋電図検査では陽性鋭波、線維自発電位を認め、短持続で低振幅の運動単位を認めたが、最大収縮では動員不良を認め、nascent motor unit potential と考えられ脱神経後の早期の神経再支配を示した変化と考えられた。右外側腓腹筋の筋病理では大小不同の筋線維がめだち、小/大群萎縮、少数の再生線維があり、脱神経・神経再支配を反映した神経原性変化の所見で、炎症細胞浸潤は認めなかった (Fig. 2)。

入院後経過：本症例では S1 神経根症、三好型遠位型筋ジ

ストロフィー、遠位型ミオパチー、炎症性ミオパチーや筋萎縮性側索硬化症などを鑑別に挙げ評価した³⁾。骨格筋 MRI、針筋電図検査で S1 支配の筋に局限した異常を認め、腓腹筋に炎症細胞浸潤が認めなかったことから、S1 神経根症による高 CK 血症と診断した。外科的治療を検討したが、患者本人が積極的加療を希望せず、対症療法で経過観察の方針となった。

考 察

本症例は、S1 神経根症・腰部脊柱管狭窄症によって下腿の筋肥大をきたさずに高 CK 血症が持続した経過約 6 年の症例である。

高 CK 血症を見た場合、ミオパチーやジストロフィン異常症などの筋疾患以外にも薬剤性や運動後によるものも鑑別として挙げられる⁴⁾。さらに筋萎縮性側索硬化症の 43.3% に高 CK 血症が認められるように⁵⁾、神経障害による高 CK 血症も頻度は少ないものの鑑別として考慮する必要がある。

腓腹部の筋肥大をきたした神経根障害では、74% に高 CK 血症 (range; 126~502 IU/l) を認め、86% に S1 神経根症をき

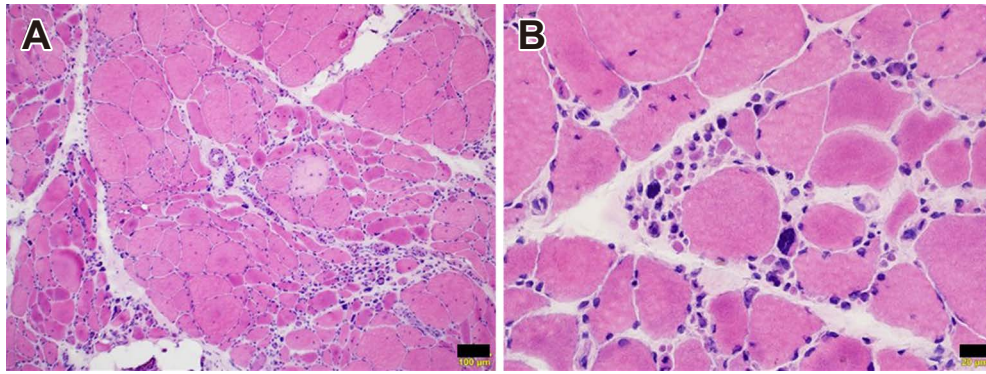


Fig. 2 Histopathology of sections from the right gastrocnemius muscle.

Note the small to large areas of atrophy and some regenerated fibers. Mononuclear cell infiltration is not seen in the endomysium. (Hematoxylin-eosin stain). (A) Bar = 100 μ m. (B) Bar = 20 μ m.

たしたことが報告されている¹⁾。S1 神経根障害以外の筋肥大の報告は前腕外傷後の手の肥大や副神経障害による僧帽筋肥大⁶⁾、L5 神経根障害による前脛骨筋の肥大⁷⁾などが報告されている。S1 神経根障害による腓腹筋肥大の報告が多い理由としては、S1 神経根が伸筋と屈筋の相反する筋を支配しているためなどといわれているが⁸⁾、正確なメカニズムは判明していない。S1 神経根症に伴う高 CK 血症では腓腹筋の筋肥大を伴うことが多いが、本症例の高 CK 血症は既報告より高値であった¹⁾。高 CK 血症を示す機序として、脱神経・再支配による筋壊死・再生に伴う影響が推察されており²⁾、長期経過によりその程度が増強された可能性が考えられる。S1 神経根症による高 CK 血症で最も高値であった症例は我々が検索した限りでは下腿の限局性筋炎を合併し 3,240 IU/l を呈した症例がある⁹⁾。S1 神経根症では下腿に限局性の炎症細胞浸潤を認めることがあり、治療の選択肢も異なることから病理検査による病態評価も重要である¹⁰⁾。

また診断について、間欠性跛行を伴う高 CK 血症では骨格筋 MRI で S1 支配筋の限局した異常を認めることが有用で²⁾、本症例においても病変の分布を把握することが可能であった。経過の長い症例では下腿後面の筋萎縮を呈することもあり²⁾、診察時に発症からの時間経過によって下腿後面の筋肥大が必ずしも認めるわけではない。本症例のように下腿後面の肥大のない症例は見逃される可能性があるため、間欠性跛行を伴う高 CK 血症では S1 神経根症の可能性を考える必要がある。

高 CK 血症を伴う神経根障害の治療方針としては、手術治療が挙げられ⁸⁾¹¹⁾、対症療法としてボツリヌス毒素の注射がある¹⁾。また筋病理で炎症細胞浸潤を認める限局性筋炎像が見られた場合はステロイド投与も行われ、有効な症例も報告されている¹⁰⁾。外科的治療に関しては術後症状が軽快しても再燃する症例もあり¹²⁾、一概に手術が根治治療となりえるとはいえない。本症例では筋病理で炎症細胞浸潤は見られず、高度の腰部脊柱管症であったが、手術療法を希望されず対症療法で経過観察をする方針となった。十分な病状/経過説明を行い、治療方針を決定することが重要と考えられる。

まとめ

間欠性跛行を伴う高 CK 血症では下腿の筋肥大がない場合でも S1 神経根症の可能性を考える必要がある。神経根症による筋障害では筋生検と骨格筋 MRI は鑑別や治療方針を決定する上で有用と考えられる。

※著者全員に本論文に関連し、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

- Costa J, Graça P, Evangelista T, et al. Pain and calf hypertrophy associated with spontaneous repetitive discharges treated with botulinum toxin. *Clin Neurophysiol* 2005;116:2847-2852.
- 佐藤 聡, 佐藤秀代, 越智 誠ら. 持続的高 CK (creatin kinase) 血症を呈し, MRI で両側下腿後面筋の信号異常を認めた腰部脊柱管狭窄症の 3 症例. *神経内科* 2010;72:303-308.
- Flachenecker P, Kiefer R, Naumann M, et al. Distal muscular dystrophy of Miyoshi type. Report of two cases and review of the literature. *J Neurol* 1997;244:23-29.
- Miller ML. Muscle enzymes in the evaluation of neuromuscular disease. UpToDate [Internet]. [cited 2019 February 11] Available from: <http://www.uptodate.com>.
- Izicka J, Stelmasiak Z. Creatine kinase activity in amyotrophic lateral sclerosis patients. *Neurol Sci* 2003;24:286-287.
- Mattle HP, Hess CW, Ludin HP, et al. Isolated muscle hypertrophy as a sign of radicular or peripheral nerve injury. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1991;54:325-329.
- Kottlors M, Mueller K, Kirschner J, et al. Muscle hypertrophy of the lower leg caused by L5 radiculopathy. *Joint Bone Spine* 2009;76:562-564.
- Swartz KR, Fee DB, Trost GR, et al. Unilateral calf hypertrophy seen in lumbosacral stenosis: case report and review of the literature. *Spine (Phila Pa 1976)* 2002;27:E406-E409.
- Khan SY, Hilton-Jones D, Rigby SP. A swollen calf. *Lancet* 2005;365:1662.
- Gross R, Degive C, Dornis E, et al. Focal myositis of the calf

- following S1 radiculopathy. *Semin Arthritis Rheum* 2008;38:20-27.
- 11) 森本大二郎, 山口 智, 大隣辰哉ら. 脊柱管内狭窄, 椎間孔狭窄を合併し, 下肢痛を呈する症例の治療方針. *脊椎外科* 2015;29:32-41.
- 12) Krendel DA, Hedaya EV, Gottlieb AJ. Calf enlargement, S1 radiculopathy, and focal myositis. *Muscle Nerve* 1992;15:517-518.

Abstract

Continuous hyperCKemia without calf muscle hypertrophy associated with S1 radiculopathy

Takashi Nakamura, M.D.¹⁾, Tatsuya Ueno, M.D., Ph.D.¹⁾, Akira Arai, M.D., Ph.D.¹⁾,
Chieko Suzuki, M.D., Ph.D.¹⁾³⁾, Ichizo Nishino, M.D., Ph.D.²⁾ and Masahiko Tomiyama, M.D., Ph.D.¹⁾³⁾

¹⁾Department of Neurology, Aomori Prefectural Central Hospital

²⁾Department of Neuromuscular Research, National Institute of Neuroscience, National Center of Neurology and Psychiatry

³⁾Present address: Department of Neurology, Hirosaki University Graduate School of Medicine

A 72-year-old man presented with continuous hyperCKemia and intermittent claudication. He exhibited no calf muscle hypertrophy at that time or afterward. Other than an increased creatine kinase (CK) level (1,525 U/l), none of the laboratory tests was abnormal, including that for myositis-related autoantibodies. Electromyography showed neurogenic changes in the left gastrocnemius. Lumbar magnetic resonance imaging revealed spinal canal stenosis (L3/4, L4/5), left L4 radiculopathy, and bilateral S1 radiculopathy. T₂-weighted and short tau inversion recovery images showed high signal intensity in the bilateral biceps femoris and gastrocnemius. Histopathological evaluation of a specimen obtained from the right gastrocnemius muscle revealed neurogenic changes. The patient was diagnosed with S1 radiculopathy caused by lumbar spinal canal stenosis with hyperCKemia. Although S1 radiculopathy with hyperCKemia is usually associated with calf muscle hypertrophy, we should consider S1 radiculopathy in patients with intermittent claudication and hyperCKemia even in the absence of calf muscle hypertrophy.

(*Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol)* 2019;59:592-595)

Key words: S1 radiculopathy, lumbar spinal canal stenosis, muscle hypertrophy, hyperCKemia, muscle MRI