

症例報告

神経内ガングリオンと考えられた神経内多発嚢胞性病変による脛骨神経麻痺

江口 克紀^{1)*} 白井 慎一¹⁾ 岩田 育子¹⁾
 松島 理明¹⁾ 矢部 一郎¹⁾

要旨：症例は 39 歳男性。右足底のしびれで発症し、徐々に感覚障害が悪化するとともに足趾の屈曲が困難になった。発症 8 か月後に当科を受診した。右下腿の脛骨神経支配筋の筋力低下、右アキレス腱反射低下、足底の表在覚低下があり、右膝窩および足根管部でチネルサインを認めた。MRI にて、右膝関節から連続し脛骨神経内に侵入する多発嚢胞性病変を認め、画像所見から神経内ガングリオンと考えられた。非典型的な末梢神経障害の症例ではチネルサインや腫瘤触知の有無を触診・打診にて確認し、神経内ガングリオンを考慮して MRI などの画像検査を行うべきである。

(臨床神経 2020;60:549-553)

Key words：神経内ガングリオン、脛骨神経麻痺、チネルサイン

はじめに

ガングリオンは関節包の近傍に生じるゼリー状の粘調性の高い液体を内容する嚢胞性の構造物である。全身の関節に生じうるが、手関節が好発部位であり、疼痛など症状を有さなければ治療を要さないことも多い¹⁾。その一方、末梢神経組織内に進展し末梢神経障害の原因となる例があり、神経内ガングリオン (intraneural ganglion) と呼ばれる²⁾。今回我々は、膝関節から脛骨神経内に進展するガングリオンと考えられる多発嚢胞性病変により脛骨神経麻痺をきたした症例を経験した。末梢神経障害の原因の一つとして注意すべき病態と考えられたため報告する。

症 例

症例：39 歳、男性

主訴：右足底の疼痛

既往歴：B 型肝炎に対しテノホビルを内服。

15 歳：スポーツ中の外傷による離断性骨軟骨炎に対し、右膝骨軟骨移植術。

35 歳：関節鏡下右膝関節クリーニング術。

家族歴：特記事項なし。

生活歴：特記事項なし。

現病歴：2018 年 10 月より腰痛、右足底のしびれが出現した。他院整形外科で腰椎椎間板ヘルニアが疑われ、保存的加

療を行い腰痛は自然に改善したが、右足底のしびれは残存した。その後経過とともに右足底のしびれは増悪し、歩行により足底部に強い疼痛を自覚するようになり、さらに右足趾の屈曲が困難となった。複数の医療機関を受診するも診断がつかず、また鎮痛剤等による対症療法が施行されたが症状の改善は得られなかった。症状の原因が不明のため 2019 年 6 月に当科外来に紹介受診し、精査のため入院となった。

入院時一般身体所見：身長 164.6 cm、体重 70.7 kg、心拍数 57/分・整、血圧 105/58 mmHg、体温 36.6°C。その他一般身体所見に異常はなかった。

入院時神経学的所見：意識清明で、脳神経系に異常は認めなかった。右下腿の脛骨神経支配筋に筋力低下を認め、徒手筋力テストでは下腿三頭筋 4/5、長趾屈筋 2/5、後脛骨筋 4/5 であった。右アキレス腱反射は消失していたが、右膝蓋腱反射は正常で、上肢および左下肢の腱反射も異常はなかった。下肢の病的反射は認めなかった。小脳系にも異常を認めなかった。感覚系では、右足底部 (踵～足趾の足底部にかけて) にしびれるような異常感覚があり、同部位に表在覚低下を認めた。右下肢内踝の後脛骨神経、および右膝窩の叩打で足底へ放散する電撃痛を認め、チネルサインと考えた。膀胱直腸障害はなく、そのほかの自律神経系の異常は認めなかった。足関節、膝関節、膝窩の触診で腫瘤を指摘することはできなかった。

検査所見：一般血液検査では、慢性 B 型肝炎のため AST 74 U/l、ALT 99 U/l、LDH 232 U/l、γGTP 280 U/l と上昇してい

*Corresponding author: 北海道大学神経内科 [〒 060-8638 北海道札幌市北区北 15 条西 7 丁目]

¹⁾ 北海道大学神経内科

(Received January 24, 2020; Accepted March 22, 2020; Published online in J-STAGE on July 7, 2020)

doi: 10.5692/clinicalneuro.60.cn-001422

た. HbA1c (NGSP 値) は 5.3% と正常であった. 血中ビタミン B1 および B12 濃度はいずれも正常であった. 自己抗体は抗 SS-A 抗体, 抗 SS-B 抗体, PR3-ANCA および MPO-ANCA を含め測定した範囲ですべて陰性であった. 神経伝導検査では, 右脛骨神経の複合筋活動電位の振幅が左と比較して低下していたが, 遠位潜時および神経伝導速度に明らかな差はなく, 軸索障害の所見であった (右複合筋活動電位振幅 :

3.1 mV, 左複合筋活動電位振幅 : 19.1 mV, 右遠位潜時 : 4.4 ms, 左遠位潜時 : 4.7 ms, 右神経伝導速度 : 42.5 m/s, 左神経伝導速度 : 45.5 m/s). 脛骨神経の F 波について, 右側で出現率の低下を認めた (右 : 50% (10/20), 左 : 100% (20/20)). 一方, 腓腹神経においては, 右感覚神経活動電位振幅 : 13.7 μ V, 左感覚神経活動電位振幅 : 8.6 μ V, 右遠位潜時 : 3.0 ms, 左遠位潜時 : 3.2 ms, 右神経伝導速度 : 49.5 m/s, 左神経伝導速度 : 49.7 m/s であり, 明らかな左右差は認めなかった. 右針筋電図検査では, 右大腿直筋, 大腿筋膜張筋, 大腿二頭筋長頭, 前脛骨筋で正常所見であったが, 右腓腹筋外側頭, 長趾屈筋において多相性 MUP と強収縮で干渉不良を認め神経原性変化の所見であった. 右膝関節 MRI では, 膝関節内側から頭側方向に向かって伸びる細長い索状の構造物が指摘され, 内部に T₂ 高信号を示す多房性の構造物を含んでいた (Fig. 1). 右大腿 MRI にて同構造物は膝関節より近位側にて脛骨神経と一塊になり, 脛骨神経内に数珠状に多数の嚢胞性病変が確認され脛骨神経は腫大していた (Fig. 2). 嚢胞性病変を内部に含む部位より遠位の脛骨神経は short T₁ inversion recovery (STIR) 像にて軽度高信号を示していた (Fig. 3). 膝関節からのびる索状構造物および嚢胞性病変は T₁Gd 増強像にて造影効果は認めなかった. 腰椎 MRI ではわずかな腰椎の変性を認めるものの, 馬尾や神経根圧迫の所見はなかった.

入院後経過 : 膝関節および大腿部の MRI にて指摘された神経内の嚢胞性病変による右脛骨神経の障害が考えられた. 同病変は膝関節内側から連続していること, 充実成分や造影効果に乏しいことから神経鞘腫など神経原性の腫瘍性疾患は否定的な画像所見であり, ガングリオンが考えられた. 対症療法を継続し, 嚢胞性病変の拡大あるいは進行性の症状悪化があれば外科的治療も考慮された. しかし, 4 か月後に撮像し

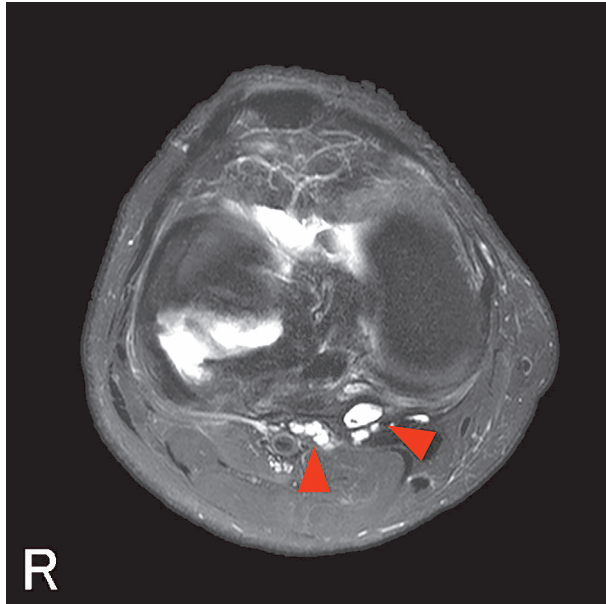


Fig. 1 MRI of the right knee.

T₂ weighted image shows high intensity polycystic lesions at the popliteal fossa (arrow heads).

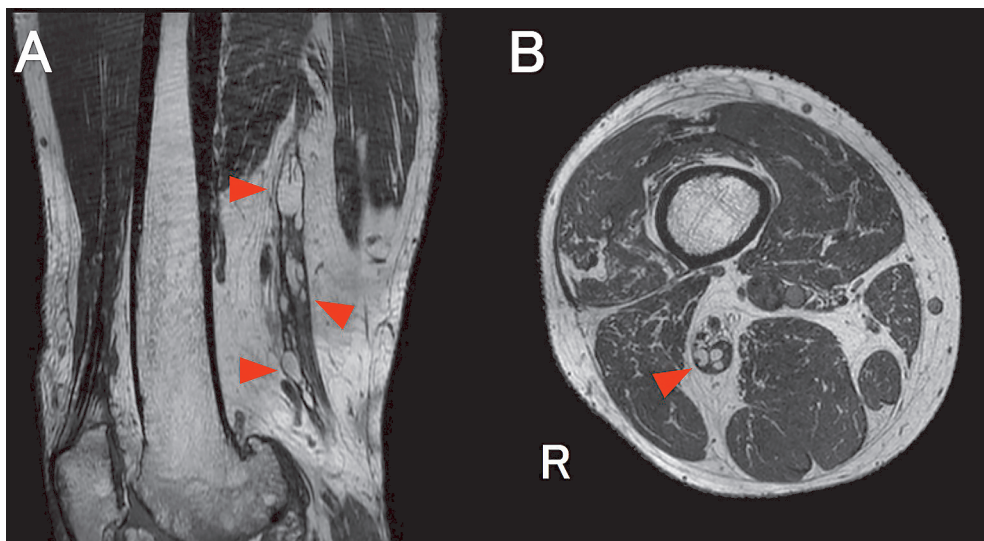


Fig. 2 MRI of the right thigh.

Multilobulated masses enlarge the right tibial nerve on constructive interference in steady state (CISS) image as highlighted by arrow heads. A: sagittal image, B: axial image.

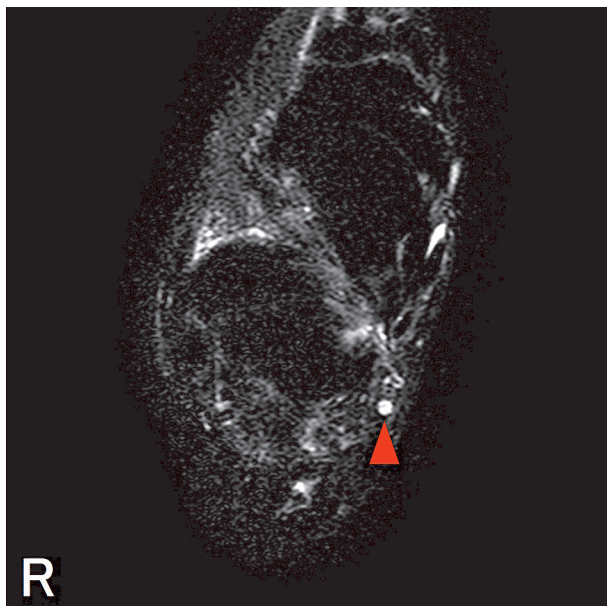


Fig. 3 MRI of the right ankle.

The right tibial nerve shows high intensity on short T_1 inversion recovery (STIR) image (arrow head).

た MRI にて嚢胞性病変は大部分が自然に消失した (Fig. 4). 同時期に再検した右脛骨神経の神経伝導検査では、複合筋活動電位振幅: 4.3 mV, 遠位潜時: 3.6 ms, 神経伝導速度: 46.4 m/s と、複合筋活動電位振幅の軽度の改善を認めた. 右下肢の感覚障害および筋力低下は残存しているが、外科的治療は行わず対症療法を継続し経過観察している.

考 察

本症例の右下腿屈筋、足趾屈筋の筋力低下と足底の感覚障害は脛骨神経障害を示唆する神経学的所見であり、神経伝導検査もこれを裏付ける結果であった. 針筋電図検査では大腿筋膜張筋および大腿二頭筋長頭は正常であったが、腓腹筋に遠の脛骨神経支配筋には神経原性変化を認めており、大腿より末梢部での脛骨神経障害が考えられた. さらに、膝窩にてチネルサインを認めたことから膝関節レベルでの病変局在を疑い、同部位の MRI を施行することで嚢胞性病変の指摘に至った. チネルサインは末梢神経の障害が生じた部位より遠位部において軸索再生時に髄鞘再生が未熟な神経において認めるとされており³⁾, 右内踝のチネルサインは膝窩部で圧迫を受けた脛骨神経の軸索障害とその再生の過程にて生じたものと考えられる. 歩行時の足底を中心としたしびれも同様に、再生過程の髄鞘が未熟な神経への機械的刺激により生じていたものとする. 本症例は脛骨神経の嚢胞性病変の外科的切除には至らず、病理学的な診断の確定には至らなかった. 末梢神経に嚢胞性の病変をきたす他疾患として、神経鞘腫などが鑑別疾患として考慮される. しかし、本症例の脛骨神経の

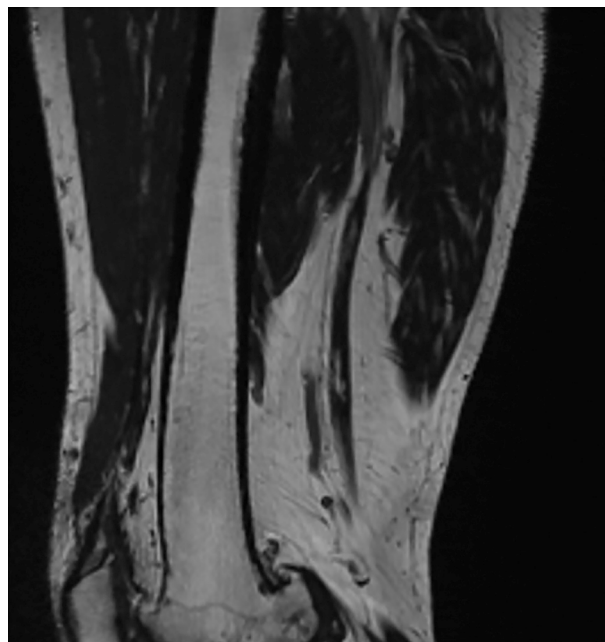


Fig. 4 MRI performed 4 months after first MRI.

Most of polycystic lesions involving the right tibial nerve vanished spontaneously.

嚢胞性病変には充実成分は指摘できず、さらに自然に縮小するという経過をたどったことから、ガングリオンの可能性が高いと考えられた. 糖尿病やビタミン欠乏など代謝性疾患、血管炎など他の末梢神経障害を来す疾患を示唆する検査所見もなく、最終的に神経内ガングリオンによる脛骨神経障害と診断した.

従来神経内ガングリオンはまれな病態と考えられていたが、近年 MRI や超音波検査などの画像検査の進歩に伴いその報告数が増加している⁴⁾. 神経内ガングリオンは未だその病因について一定のコンセンサスは得られていない. しかし、神経内ガングリオンが末梢神経の関節枝 (articular branch) を介して関節と連続している例がみられること⁵⁾⁶⁾, 関節造影にて関節内と神経内ガングリオンの嚢胞内に連続性が確認される⁷⁾⁸⁾ ことなどから、関節に生じたガングリオンが末梢神経の関節枝に沿って神経内に進展する articular theory が病因の一つとして提唱されている. 神経内ガングリオンは下肢では膝関節近傍で腓骨神経に、上肢では肘関節にて尺骨神経に生じる例が多いが、肩関節・手関節・股関節・足関節など全身の関節で発生報告がある. しかし、膝窩部での脛骨神経の障害は神経内ガングリオンのうち 5% 程度と報告されており²⁾, 本症例の障害部位は比較的まれであると考えられる. 神経ガングリオンの形成の誘因として一部に外傷が影響したと考えられる報告がある^{9)~11)}. 本症例においては、右膝の外傷歴および 2 度の右膝関節手術歴があった. 右膝関節の手術の詳細な情報は得ることができず手術部位とガングリオン発生部位が一致するかの確認はできなかったが、本症例においても外

傷歴や手術歴が膝関節のガングリオン発生に影響を与えた可能性がある。

神経内ガングリオンに対する標準的治療法は十分に確立していない。無症状あるいは症状の軽い症例では経過観察や対症療法が行われ、自然に縮小した例も報告されている。侵襲的な治療としては、ガングリオン嚢胞内容物の穿刺吸引、ガングリオンの切開または切除、関節と連続している末梢神経の関節枝の離断などが行われている。Desy らは神経内ガングリオンの治療法と再発率についてまとめ、単なる内容物の穿刺吸引は再発頻度が高いと報告しており、articular theory の観点から末梢神経の関節枝を結紮等で関節との連続を断つことが再発予防に有用であるとしている²⁾。本症例は対症療法で経過観察していた過程で嚢胞性病変が自然に縮小したため、外科的治療は行わなかった。本症例の経過からは、神経内ガングリオンは症状が進行性に悪化する経過でなければ、自然消退を期待し数か月程度経過観察することも治療方針の一つとして考慮される。

神経内ガングリオンは国内からも複数の報告があるが、その多くは整形外科からの報告である^{11)~17)}。MRI やエコーが行われる前の診断が確定していない段階では原因不明の末梢神経障害として脳神経内科で診療する可能性がある疾患と考えられる。本症例では膝窩にてチネルサインを認めたことは膝関節の画像検査を行うきっかけとなり、非常に有用な所見であった。膝関節における神経内ガングリオンによる脛骨神経障害の既報でも、膝窩にて触診で腫瘍性病変を触知できた例や脛骨神経にそった圧痛を認めた例が報告されており¹⁸⁾¹⁹⁾、触診や打診の所見が本疾患の診断にあたり有用であると考えられる。脛骨神経の単独麻痺のような非典型的な末梢神経障害では、近傍関節の触診、チネルサインや神経に沿った圧痛の有無が本疾患の鑑別に有用であり、これらの診察で異常を認める場合は積極的に画像検査を行うべきである。

※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

- Minotti P, Taras JS. Ganglion cysts of the wrist. *J Am Soc Surg Hand* 2002;2:102-107.
- Desy NM, Wang H, Elshiekh MA, et al. Intraneural ganglion cysts: a systematic review and reinterpretation of the world's literature. *J Neurosurg* 2016;125:615-630.
- Napier JR. The significance of Tinel's sign in peripheral nerve injuries. *Brain* 1949;72:63-82.
- Visser LH. High-resolution sonography of the common peroneal nerve: detection of intraneural ganglia. *Neurology* 2006;67:1473-1475.
- Spinner RJ, Atkinson JL, Scheithauer BW, et al. Peroneal intraneural ganglia: the importance of the articular branch. *Clinical series. J Neurosurg* 2003;99:319-329.
- Spinner RJ, Atkinson JL, Tiel RL. Peroneal intraneural ganglia: the importance of the articular branch. A unifying theory. *J Neurosurg* 2003;99:330-343.
- Malghem J, Vande berg BC, Lebon C, et al. Ganglion cysts of the knee: articular communication revealed by delayed radiography and CT after arthrography. *AJR Am J Roentgenol* 1998;170:1579-1583.
- Spinner RJ, Amrami KK, Rock MG. The use of MR arthrography to document an occult joint communication in a recurrent peroneal intraneural ganglion. *Skeletal Radiol* 2006;35:172-179.
- Spinner RJ, Crnkovich F, Ahmed Ibrahim Kobeal M, et al. Can trauma cause tibial intraneural ganglion cysts at the superior tibiofibular joint? *Clin Anat* 2012;25:785-787.
- Spinner RJ, Ibrahim Elshiekh MA, Tubbs RS, et al. Posttraumatic torsional injury as an indirect cause of fibular intraneural ganglion cysts: case illustrations and potential mechanisms. *Clin Anat* 2012;25:641-646.
- 樋口晴久, 河井秀夫, 蒲生和重. 肘頭骨折後に生じた尺骨神経ガングリオンの 1 例 (会). *末梢神経* 2009;20:184-185.
- 阿部高久, 信田進吾, 日下部隆. 神経内ガングリオンによる総腓骨神経麻痺の 1 例. *東北整形災害外科学会雑誌* 2016;59:191-194.
- 田邨一訓, 村松慶一, 橋本貴弘ら. 腓骨神経内ガングリオンの治療経験. *中国・四国整形外科学会雑誌* 2013;25:165-169.
- 米山励子, 杉原俊弘, 清水邦明ら. 腓骨神経内ガングリオンの 1 例. *東日本整形災害外科学会雑誌* 2006;18:185-188.
- 安田健一, 湯浅勝則, 松木達也ら. 尺骨神経内ガングリオンによる肘部管症候群の 1 例. *東北整形災害外科紀要* 2001;45:86-89.
- 樋口晴久, 河井秀夫, 蒲生和重ら. 膝窩部に発生した神経内ガングリオンの 1 例 (会). *末梢神経* 2008;19:271-273.
- 歌島大輔, 穴澤卯圭, 堀田 拓ら. 坐骨神経に発生した神経内ガングリオンの 1 例. *整形外科* 2011;62:442-445.
- Buckley CE, Tong E, Spence LD, et al. Intraneural ganglion cyst involving the tibial nerve-a case report. *BJR Case Rep* 2017;3:20160116.
- Patel P, Schucany WG. A rare case of intraneural ganglion cyst involving the tibial nerve. *Proc (Bayl Univ Med Cent)* 2012;25:132-135.

Abstract**A case of tibial nerve palsy due to intraneural ganglion cysts**

Katsuki Eguchi, M.D.¹⁾, Shinichi Shirai, M.D., Ph.D.¹⁾, Ikuko Iwata, M.D., Ph.D.¹⁾,
Masaaki Matsushima, M.D., Ph.D.¹⁾ and Ichiro Yabe, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾ Department of Neurology, Faculty of Medicine and Graduate School of Medicine, Hokkaido University

A 39-year-old man presented with an 8-month history of pain and paresthesia of the right foot sole and difficulty in the right toe dorsiflexion. A neurological examination revealed weakness in performing both the ankle and right foot toe dorsiflexion, reduced right planta pedis sensation, and absent right Achilles tendon reflex. Tinel's sign was present on the right popliteal fossa and medial part of the right ankle. MRI of the right knee showed multiple cystic lesions in his right tibial nerve. The cystic lesions extended from the popliteal fossa and were thought to be intraneural ganglion cysts. On MRI performed 4 months later, most of the cystic lesions spontaneously vanished. Therefore, intraneural ganglia should be considered when atypical mononeuropathy, such as tibial nerve palsy, is present.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2020;60:549-553)

Key words: intraneural ganglion, tibial nerve palsy, Tinel's sign
