短　　報

カンピロバクター腸炎後の感覚型 Guillain–Barré syndrome が疑われた 1 例

板村　真司[1)]*　出雲　大幹[1)]　小野　浩明[1)]

要旨：症例は 9 歳女児．カンピロバクター腸炎発症 7 日後から激しい両側足底痛を生じて入院した．入院時，四肢筋力は保たれ，深部腱反射正常だが，足底痛のため歩行困難であった．運動神経伝導検査異常なし．脳脊髄液蛋白細胞解離なし．腰椎 MRI で第 4，5 腰椎の神経根造影効果あり．足底痛にはガバペンチンが奏効し退院した．入院時血清から複数の抗ガングリオシド抗体が検出された．発症から半年経過して症状消失しており，感覚型 Guillain–Barré syndrome（GBS）が疑われた．カンピロバクター腸炎後の GBS は急性運動軸索型ニューロパチーと認識されており貴重な症例と考えられた．

（臨床神経 2022;62:301-304）
Key words：Guillain–Barré syndrome，カンピロバクター，感覚型

はじめに

Campylobacter jejuni は Guillain–Barré syndrome（GBS）の原因菌として最も頻度が高く，その臨床像は急性運動軸索型ニューロパチー（acute motor axonal neuropathy，以下 AMAN と略記）と広く認識されている[1)]．今回われわれはカンピロバクター腸炎後に，筋力低下を伴わない激しい足底痛で発症した感覚型 GBS と考えられた 1 女児例を経験したので報告する．

症　　例

患者：9 歳女児
主訴：足底の激しい痛み
既往歴・家族歴：特記事項なし．
生活歴：小学 4 年生，常用薬なし．
現病歴：2020 年 12 月初旬，足底痛発症 7 日前から発熱，腹痛を生じて前医で胃腸炎と診断された．ホスホマイシン内服で解熱，腹痛は軽快したが，両側の足底痛を生じた．アセトアミノフェン内服は無効で，徐々に針で刺されるような激痛に悪化し，発症 7 日目には歩行困難となり精査加療目的に当院紹介入院した．
入院時現症：身長 135 cm，体重 31 kg，バイタルサイン異常なし，胸腹部異常なし，皮疹・出血斑なし．
神経学的所見：意識清明，見当識良好，脳神経異常なし．四肢筋力正常，深部腱反射は上腕二頭筋・上腕三頭筋・腕橈骨筋・膝蓋腱反射・アキレス腱反射ともに正常．上肢感覚障害なし，下肢感覚は主に両側足底だが下肢全域に灼熱性の異常感覚を訴え，ラゼーグ兆候陽性．痛みが激しく痛覚以外の下肢感覚は評価不可．協調運動障害なし，不随意運動なし，自律神経障害なし．
検査所見：一般血液検査，尿検査異常所見なし，便培養では *Campylobacter jejuni* 検出．脳脊髄液検査では，細胞数 1/mm^3（単核球），蛋白 40 mg/dl，IgG index 0.87．頭部 MRI 異常なし．造影腰椎 MRI では，神経根腫大や馬尾造影効果はないが，第 4，5 腰椎椎神経根の造影効果を認めた（Fig. 1A, B）．神経伝導検査では，運動神経異常なし，感覚神経は痛みのため検査不可（Table 1）．
臨床経過：GBS が疑われる経過ではあったが確定診断に至らず，GBS としても免疫グロブリン大量療法の適応はないと判断した．疼痛にアセトアミノフェン，イブプロフェンは無効だったが，発症 9 日目から開始したガバペンチンが著効した．発症 12 日目には，短距離なら歩行可能な状態にまで痛みが緩和したため退院．発症 26 日目，足底痛は軽い痺れを感じる程度にまで改善していた．神経伝導検査では，運動神経異常なし．感覚神経伝導速度正常，振幅の軽度低下を認め

*Corresponding author: 県立広島病院小児科〔〒 734-8530　広島県広島市南区宇品神田 1 丁目 5-54〕
1) 県立広島病院小児科
（Received September 14, 2021; Accepted November 22, 2021; Published online in J-STAGE on March 29, 2022）
doi: 10.5692/clinicalneurol.cn-001702

Supplementary data for this article is available in our online journal.
Official Website　http://www.neurology-jp.org/Journal/cgi-bin/journal.cgi
J-STAGE　https://www.jstage.jst.go.jp/browse/clinicalneurol

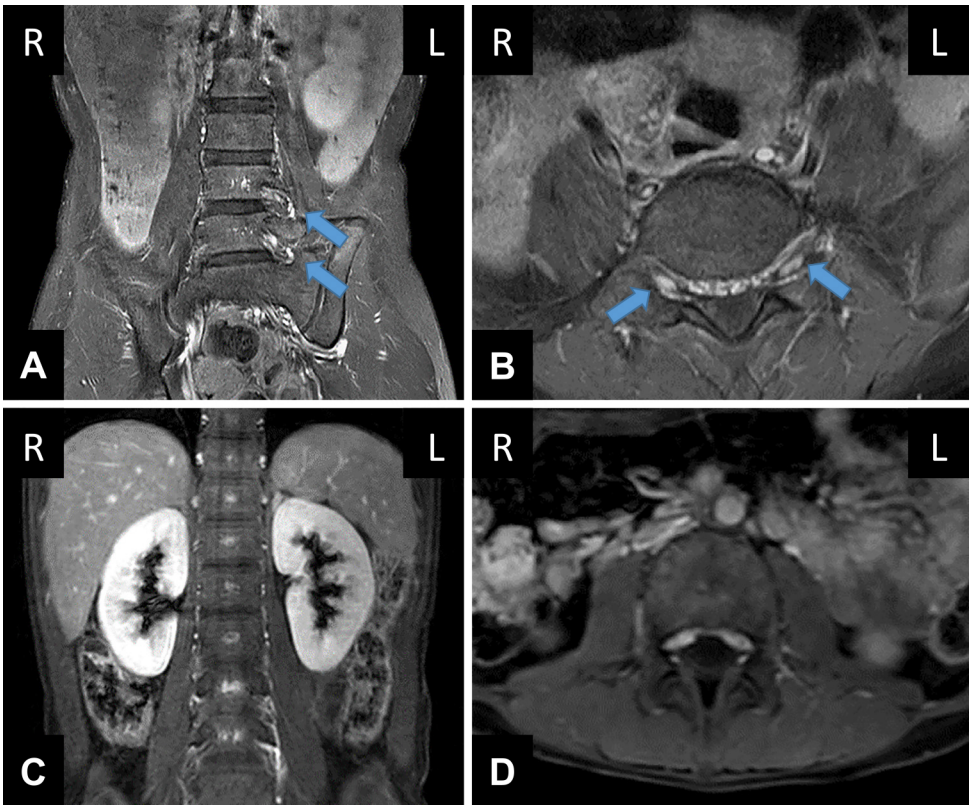

Fig. 1　Lumbar spine-enhanced MRI (Gd enhanced T_1W1).
No cauda equina effect or nerve root swelling; however, a slight nerve root contrast-enhanced effect was noted on admission (A, B). The nerve root contrast-enhanced on MRI disappeared on day 26 (C, D).

Table 1　Nerve conduction studies.

Motor nerve (tibial nerve) conduction study

	Distal letency (ms)	Amplitude (μV)	Conduction velocity (m/s)
day 7	4.2	13.0	50.4
day 26	4.3	11.8	45.7
day 61	3.2	15.0	45.0
day 215	3.6	12.2	44.4

Sensory nerve (sural nerve) conduction study

	Distal letency (ms)	Amplitude (μV)	Conduction velocity (m/s)
day 26	3.0	5.4	46.4
day 61	3.1	16.2	47.6
day 215	2.8	16.1	48.9

た（Table 1）．脳脊髄液検査では，細胞数 1/mm^3（単核球），蛋白 22 mg/dl，IgG index 0.57 と低下．腰椎 MRI で神経根造影効果は消失した（Fig. 1C, D）．発症第 61 日目には，足底痛は消失，感覚神経伝導検査で振幅も正常化した（Table 1）．発症から 6 カ月間経過，症状再燃なく，神経伝導検査正常のため終診とした．入院時血清を用いて近畿大学神経内科に依頼した糖脂質抗体検査は GM1，GM2，GD1a，GD1b，GAlNAc-GD1a 抗 IgM 抗体，及び GM1，GM3，GD1a 抗 IgG 抗体が陽性であった（supplemental table）．

考　察

カンピロバクター腸炎後に，筋力低下を伴わない激しい両側足底痛を生じた症例であった．先行感染から 1 週間後に左右対称性の異常感覚で急性発症，経過を通して筋力低下はなく，運動神経伝導検査は正常，急性期に腰椎神経根造影効果，亜急性期に感覚神経伝導検査で振幅低下を認めており，感覚型 GBS が疑われた．感覚型 GBS は非常に稀であり，既存の報告も症例報告レベルのものが多い[2)~8)]．特異的な抗ガングリオシド抗体も判明しておらず疾患概念も未だ確立していないため，現在でも 1981 年に Asbury が提唱した急性発症，筋力低下を伴わないこと，四肢対称性の障害分布，良好な予後，脳脊髄蛋白細胞解離，感覚神経の脱髄所見が狭義の感覚型 GBS の診断基準として用いられている[8)]．Uncini らは，1980 年以降の感覚型 GBS の症例報告をまとめて障害部位と予後などから，上記の狭義の診断基準を満たす末梢神経脱髄型の他に，失調をきたし予後不良の大径線維の軸索変性または後根神経節における大径感覚細胞の障害に対応する acute sensory large-fiber axonopathy-gangliopathy，深部腱反射は保持され，感覚障害が温痛覚に限定する小径線維または後根神経節における小径感覚細胞の障害に対応する acute sensory small-fiber neunopathy-gangliopathy の三つに分類することを提案している[3)4)]．本症例は脱髄所見を認めず狭義の感覚型 GBS の診断基準は満たしていない．失調症状なく，深部腱反射は保持されており，足底痛のデルマトームに一致する第 4 腰椎に神経根造影効果を認め，ラゼーグ兆候陽性の痛みを主症状とし，予後良好であったことから小径細胞型に近い病態と考えられたが，亜急性期の感覚伝導検査で振幅の低下を認めており大径細胞型への病態の波及も疑われた．

本症例では複数の抗ガングリオシド抗体が陽性であったが，Miyazaki らの acute sensory small-fiber axonopathy-gangliopathy の症例において病態関与が推測されている IgM 型抗 GalNAc-GD1a 抗体も陽性であったことが注目される[2)]．IgM 型抗 GalNAc-GD1a 抗体はサイトメガロウイルス感染で GM2 と交差反応を生じて感覚障害，脳神経障害を生じることが報告されている[9)]．カンピロバクター腸炎後には抗 GM1 抗体陽性率が高く，AMAN の発症が広く認識されているが，抗 GalNAc-GD1a 抗体の陽性率も高いことが報告されている[10)]．カンピロバクター腸炎後の感覚型 GBS の報告は過去 1 例のみだが[5)]，本症例のような疑い症例を含めると稀ならず存在する可能性もあり，今後の症例の蓄積が望まれる．

結語として，カンピロバクター腸炎後の疼痛では感覚型 GBS も鑑別にあげる必要がある．

Supplemental table: Enzyme linked immunosorbent assay (ELISA) results.

謝辞：抗糖脂質抗体を測定していただきました近畿大学神経内科 楠進先生に深謝いたします．

※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，団体はいずれも有りません．

文　献

1）海田賢一，楠進．抗ガングリオシド抗体―ギラン・バレー症候群とその関連疾患における病態への関与―．日本臨床免疫学会会誌 2011;1:29-39.
2）Miyazaki Y, Koike H, Ito M, et al. Acute superficial sensory neuropathy with generalized anhidrosis, anosmia, and ageusia. Muscle Nerve 2011;43:286-288.
3）Uncini A, Yuki N. Sensory Guillain-Barre syndrome and related disorders: an attempt at systematization. Muscle Nerve 2012; 45:464-470.
4）飯島正博，小池春樹，祖父江元．Guillain-Barré 症候群の亜型「純粋感覚型」．神経内科 2013;78:50-56.
5）Rajabally YA, Kass-Hout T, Wilson P, et al. Sensory Guillain-Barré syndrome after Campylobacter jejuni infection. Eur J Neurol 2007;14:e11-e12.
6）Semproni M, Gibson G, Kuyper L, et al. Unusual sensory variant of Guillain-Barré syndrome. BMJ Case Rep 2017: bcr2016218935.
7）Seneviratne U, Gunasekera S. Acute small fibre sensory neuropathy: another variant of Guillain-Barré syndrome? J Neurol Neurosurg Psychiatry 2002;72:540-542.
8）Asbury AK. Diagnosis considerations in Guillain-Barré syndrome. Ann Neurol 1981;9 suppl:1-5.
9）Kaida K, Kusunoki S, Kamakura K, et al. Guillain-Barré syndrome with IgM antibody to the ganglioside GalNAc-GD1a. J Neuroimmunol 2011;113:260-267.
10）Yuki N, Taki T, Handa S. Antibody to GalNAc-GD1a and GalNAc-GM1b in Guillain-Barré syndrome subsequent to Campylobacter jejuni enteritis. J Neuroimmunol 1996;71: 155-161.

Abstract

A case suspected Sensory Guillain–Barré syndrome subsequent to Campylobacter jejuni enteritis

Shinji Itamura, M.D.[1)], Hiroki Izumo, M.D.[1)] and Hiroaki Ono, M.D., Ph.D.[1)]

[1)] Department of Pediatrics, Hiroshima Prefectural Hospital

A 9-year-old girl was admitted to our hospital with severe plantar pain, 7 days after the onset of *Campylobacter jejuni* enteritis. On admission, extremity strength and the deep tendon reflex were normal; however, there was difficulty in walking owing to plantar pain. Motor nerve conduction test showed no abnormalities. No spinal cord protein cell dissociation. Lumbar spine-enhanced MRI showed a 4th and 5th lumbar vertebrae nerve root contrast-enhanced effect. Gabapentin was effective in minimizing her pain, eventually enabling the patient to walk. Antiganglioside antibody tests on admission showed multiple positive results. Six months after the initial onset of symptoms, she had recovered completely. She was suspected with sensory Guillain–Barré syndrome (GBS). GBS subsequent to *Campylobacter jejuni* enteritis has been recognized as an acute motor axonal neuropathy; hence, this report is considered to be valuable.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2022;62:301-304)

Key words: Guillain–Barré syndrome, Campylobacter jejuni, sensory type