

自覚的な発汗の左右差を伴う Brown-Séquard 症候群に 回盲部膿瘍と腹腔内の痛覚鈍麻を合併した急性脊髄炎の 1 例

山本 真義^{1)*} 里井 齊¹⁾ 松本 禎之¹⁾

要旨：症例は 47 歳男性である。2017 年 11 月、左肩疼痛と左上肢筋力低下が出現した。翌日右上下肢異常感覚と左上下肢発汗低下を自覚、その後右半身温痛覚鈍麻と左上下肢筋力低下が進行した。MRI で頸髄病変を認め、急性脊髄炎に伴う Brown-Séquard 症候群と診断、ステロイド投与と血漿交換療法を行い筋力は改善した。治療中に併発した右側の腹腔内膿瘍の腹痛が左側のみで右側の腹痛が乏しかった。Brown-Séquard 症候群に腹腔内痛覚鈍麻を合併していた。頸椎 C3/4 レベルに両側性病変を認め、同病変が左側の体性感覚経路に加えて、腹腔内の内臓性感覚経路を両側性に障害し、痛覚鈍麻がより顕在化した可能性がある。

(臨床神経 2019;59:282-285)

Key words : ブラウン・セカール, 脊髄炎, 発汗障害, 腹痛

前 文

Brown-Séquard 症候群は、患側の運動障害と解離性感覚障害を主徴とする神経症候群である¹⁾。内科的疾患に Brown-Séquard 症候群を合併することは少なく²⁾³⁾、自律神経障害を伴う症例報告は更に稀である⁴⁾⁵⁾。今回発汗の左右差を伴う急性脊髄炎に合併した Brown-Séquard 症候群の症例を経験した。免疫治療中に腹腔内膿瘍を併発したが、腹痛の自覚が乏しかった。文献の考察を加え報告する。

症 例

症例：47 歳男性

主訴：左上下肢筋力低下

既往歴：先天性二尖弁、大動脈弁置換術後、2017 年 9 月に水分摂取過多、体重減少を契機に初めて糖尿病と診断された、C 型肝炎。

生活歴：喫煙中 10 本 27 年、飲酒なし。

内服薬：ワーファリン 2 mg、ピソプロロールフマル酸塩 3.125 mg、インスリングルルギン 8 単位、インスリンアスパルト 10 単位、ウルソデオキシコール酸 100 mg。

生活歴：看護師として勤務。

現病歴：2017 年 11 月初旬、咳を中心とした感冒症状あり。11 月中旬某日、昼過ぎより左肩の疼痛が出現し、その後夕方に左肩の疼痛が増強、左上肢の痛みが出現、左上肢遠位筋の筋力低下と歩行時の左下肢脱力を自覚した。翌日右上下肢の

異常感覚、左上下肢の発汗低下を自覚し、左上下肢筋力が MMT (徒手筋力テスト) 1 に低下した。精査加療目的に入院した。

入院時現症：身長 168 cm、63.8 kg、一般身体所見に特記なし、意識清明、見当識正常、脳神経領域異常なし、左上下肢 MMT1 レベル (左母指・示指の伸展のみ 2 レベル)、上腕二頭筋反射 +/-、腕橈骨筋反射 +/-、上腕三頭筋反射 +/-、膝蓋腱反射 +/+、アキレス腱反射 +/-、Babinski 徴候 -/-、左頸部から左肩にかけての軽度の疼痛、温痛覚は右上下肢外側で対側に比して 3/10 に鈍麻、振動覚と触覚明らかな左右差なし。

検査所見：末梢血液像・生化学検査で肝酵素 AST 36 IU/l (正常対照 13~30 IU/l)、ALT 51 IU/l (正常対照 10~42 IU/l) と軽度高値、HbA1c 6.9% と高値を認めた以外に特記なく、抗核抗体と抗アコアポリン抗体は陰性であった。髄液検査では単核球 1/μl と正常、蛋白 62.1 mg/dl と軽度上昇を認めた。髄液培養は陰性、オリゴクローナルバンド陰性、IgG index 0.49、髄液中 myelin basic protein は感度以下であった。MRI では頸椎 C3~6 レベルに左優位の T₂ 高信号を認めた (Fig. 1)。胸腰髄 MRI は正常であった。

臨床経過：入院当日右半身の温痛覚鈍麻が進行し、左上下肢筋力低下も持続した。外傷歴なく、急性脊髄炎に伴う Brown-Séquard 症候群と診断し、同日よりステロイドパルス療法 (メチルプレドニゾン 1,000 mg/day 3 日間) を行い、以降プレドニゾンの内服を継続した。加えて血漿交換療法を 4 回行い、左上下肢筋力は改善した (Fig. 2)。発症第 23 日目に左腹痛を自覚し、腹部 CT にて回盲部膿瘍および肝門部の

*Corresponding author: 田附興風会医学研究所北野病院神経内科 [〒 530-8480 大阪市北区扇町 2 丁目 4 番 20 号]

¹⁾ 田附興風会医学研究所北野病院神経内科

(Received December 15, 2018; Accepted March 1, 2019; Published online in J-STAGE on April 26, 2019)

doi: 10.5692/clinicalneuroil.cn-001261

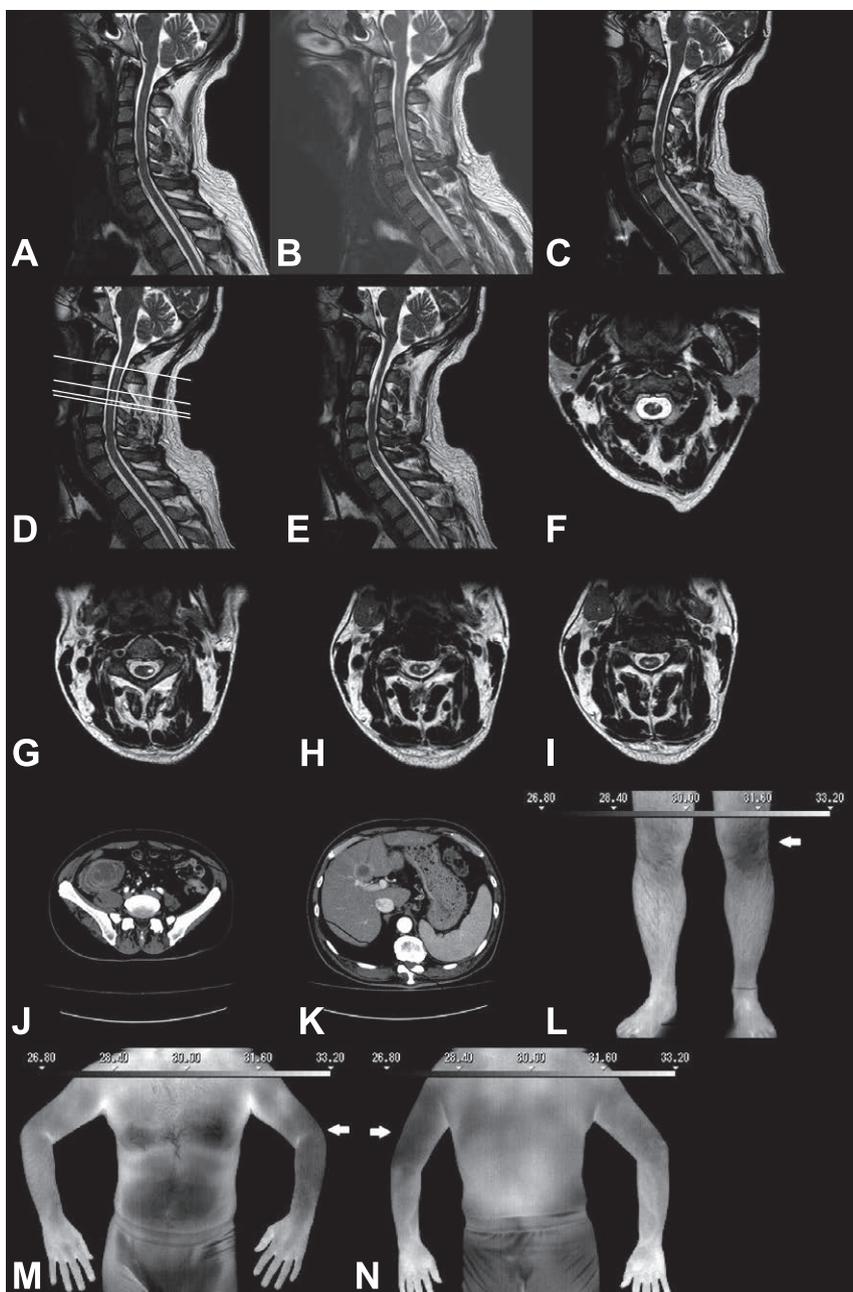


Fig. 1 MRI of cervical spine, abdominal CT, and thermography.

Panel A shows T₂-weighted sagittal MRI at 1.5 T (repetition time (TR), 3,300 ms; echo time (TE), 120 ms), on admission (day 1). Panel B shows T₂-weighted sagittal MRI at 1.5 T (TR, 3,300 ms; TE, 120 ms) on the second day. Panels C, D, and E show T₂-weighted sagittal MRI at 1.5 T (TR, 3,300 ms; TE, 120 ms) on the 54th day after admission of the right side of the spine (C), the median line (D) and the left side (E) in order. Images in panels F, G, H, and I were taken on the same day. Panels F, G, H, and I show T₂-weighted axial MRI at 1.5 T (TR, 2,143 ms; TE, 120 ms) taken at the C2 (F), C3 (G) and C3/4 (H, I) level of the spine. Panel D shows four lines, which indicate the axial levels in panels F, G, H, and I. Panels J and K show CT axial images, including ileocecal abscess and liver abscess on the 22nd admission day. Images in panels (F, G, H, I, J, and K) on the left side depict the right side of the patient, those in the panels on the right side depict the left side of the patient. Panels L, M, and N show thermography images from the anterior position (L, M) and posterior position (N), performed using infraEye (Fujitsu Tokki System, Kanagawa, Japan) after discharge. The bars represent the temperature, unit = °C. Darker color lesion shows colder skin temperature, and lighter does warmer. Note the relatively dark colored lesions (arrows).

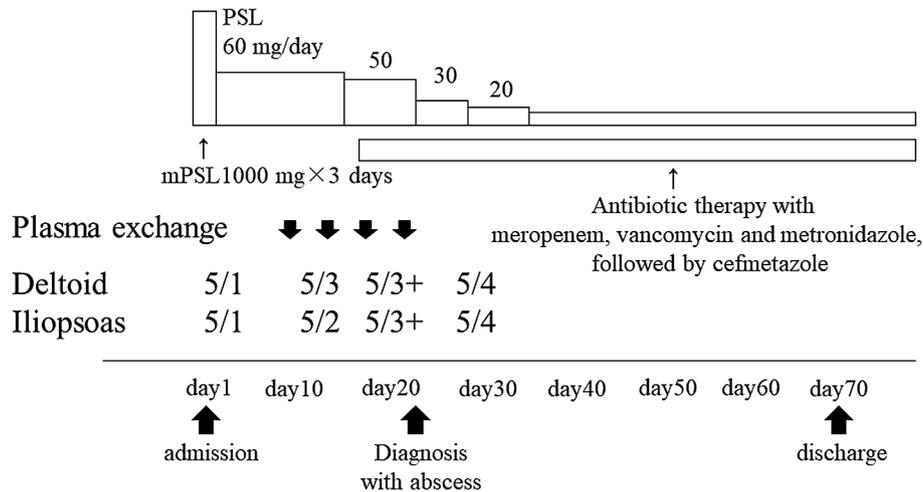


Fig. 2 Clinical course of the patient.

PSL = prednisolone, mPSL = methylprednisolone, Plasma exchange = plasma exchange therapy, Deltoid = deltoid muscle, Iliopsoas = iliopsoas muscle.

膿瘍 (Fig. 1J, K) が判明した。同日、血清 IgG 値は 364 mg/dl と低値であった。膿瘍が判明した翌日発症第 24 日目より発熱を認めた。右側の腹痛が乏しかった。抗生剤加療を継続し、膿瘍は縮小傾向となった。退院後も左上下肢の発汗低下の自覚は持続し、退院 8 カ月後に施行したサーモグラフィーでは、体温の左右差を認めた (Fig. 1L~N)。体幹を含む右半身の頸髄 C3 支配レベル以下の皮膚に温痛覚鈍麻を認め、右上下肢には熱湯を冷たく感じる錯感覚を認めたが、触覚と振動覚は正常であった。

考 察

本例の病態について髄液検査の結果から感染性脊髄炎は否定的と考え、自己免疫性の機序を推定した。過去に非感染性の脊髄炎と腹腔内膿瘍の合併例報告は検索した限りなく、本例の腹腔内膿瘍の原因として糖尿病、C 型肝炎を背景とした強力な免疫治療による免疫力低下を考えた。

本例と同様に神経学的所見で健側の温痛覚障害、患側の運動障害、患側の深部覚障害が全て揃わない症例は、不全型 Brown-Séquard 症候群として報告されている⁵⁾⁶⁾。MRI 所見から、頸椎 C2 レベルでの前側索系経路の障害 (Fig. 1F) および頸椎 C3 レベルの外側皮質脊髄路障害 (Fig. 1G) が推定された¹⁾。本例のように内科的疾患に Brown-Séquard 症候群を合併することは少なく^{2)~7)}、自律神経障害を伴う症例報告は更に稀であり、検索した限り既報告は膀胱直腸障害を示した 2 例のみであった⁴⁾⁵⁾。発汗に関わる自律神経の遠心路は同側性および一部交叉性の経路が推定されており、一側性の脊髄障害では完全な無汗には至らず多節節性の発汗障害を来す^{8)~10)}。本例で認めた自覚的な発汗の左右差は、脳幹から胸腰髄中間帯外側部の交感神経の中継核へ至る経路が左優位に障害されていることが原因と考えられた¹⁾。また、発汗機能は蒸発性の熱

発散に関与すると考えられるが⁹⁾、逆にサーモグラフィーでは体温低下を認めた。自律神経系が末梢脂肪組織の熱産生や寒冷暴露時の血管収縮にも寄与するため、その障害により発汗低下と相反する体温低下を来したと考えた⁹⁾。

Brown-Séquard 症候群に腹腔内の痛覚鈍麻を来しうることが重要である。過去に Brown-Séquard 症候群に伴った腹腔内感染症あるいは腹腔内の痛覚障害についての報告は検索した限りなく膿瘍の痛みを自覚できない程度の腹腔内の感覚鈍麻は来し難いと推定された。本例において右側腹壁の体性感覚系の痛みは自覚しにくく感覚鈍麻に大きく寄与したと考えられるが、今回は体性感覚に加えて、C3/4 レベルの両側性の頸髄病変が同側性および交叉性に上行する腹腔内由来の内臓性感覚経路を共に障害したため、右側の痛みの自覚の完全な消失に至った可能性がある。過去に詳細に痛覚神経の交叉性について検討した報告は少ない。また Brown-Séquard 症候群における痛覚鈍麻についても皮膚痛覚についての記載が多く、内蔵痛覚についての言及は乏しい。Hirai らと Longhurst によると、腹腔内由来の内臓性痛覚系には、大部分が交叉性に腕傍核と中脳水道周囲灰白質に投射する脊髄中脳路と、同側性および交叉性に橋および延髄網様体に投射する脊髄網様体路があり、これらの経路は前側索系を上行し、感覚情報は扁桃体や視床下部や島皮質へ入力する¹⁾⁸⁾⁹⁾。本例では、両側の脊髄病変 (Fig. 1H, I) のうち、特に Fig. 1H のレベルで両側性に前側索系経路が障害されていると判断した。ただ一方で、両側病変により痛覚抑制に関わるセロトニン作動性の縫線核脊髄路¹⁾が両側性に障害され、逆に痛覚過敏につながる可能性も考えられる。Brown-Séquard 症候群における疼痛の評価には注意を要する。本例は内臓性感覚系と自律神経系の解剖学的走行を考える上で、重要な臨床症状を示した症例と考えられ、報告した。

※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

- 1) Haines DE. Neuroanatomy: An atlas of structures, sections, and systems. Sixth Edition, Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2004 (third Japanese edition 2005).
- 2) Hosaka A, Nakamagoe K, Watanabe M, et al. Magnetic resonance images of herpes zoster myelitis presenting with Brown-Séquard syndrome. Arch Neurol 2010;67:506-507.
- 3) Moon SJ, Lee JK, Kim TW, et al. Idiopathic transverse myelitis presenting as the Brown-Séquard syndrome. Spinal Cord 2009; 47:176-178.
- 4) Dubey D, Modur PN. Teaching NeuroImages: partial Brown-Séquard syndrome: a rare presentation of CMV myelitis. Neurology 2014;83:e80.
- 5) De Mesa C, Dy R. Transverse myelitis with Brown-Séquard syndrome as a manifestation of lupus: a case report. PM & R 2013;5:263-264.
- 6) Ralot TK, Singh R, Bafna C, et al. Brown-Séquard syndrome as a first presentation of multiple sclerosis. Malays J Med Sci 2017;24:106-110.
- 7) Vieira MA, Costa CH, Vieira CP, et al. Transverse myelitis with Brown-Séquard syndrome after H1N1 immunization. Arq Neuropsiquiatr 2012;70:555.
- 8) Hirai T, Kuroiwa Y, Tamura N, et al. Decussation in the autonomic and limbic nervous system. Neurological Medicine 2016;84:362-374.
- 9) Llewellyn-Smith IJ, Verberne AJ. Central Regulation of Autonomic Functions. 2nd Edition, New York: Oxford University Press; 2011. p.3-22, 161-179, 324-344.
- 10) Saito H. Sudomotor impairment in general body surface caused by lesions of the central nervous system. Autonomic Nervous System 2014;51:203-205.

Abstract

Acute myelitis with Brown-Séquard syndrome complicated with subjective sudomotor laterality and ileocecal abscess without right abdominal pain

Masayoshi Yamamoto, M.D.¹⁾, Hitoshi Satoi, M.D., Ph.D.¹⁾ and Sadayuki Matsumoto, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Kitano Hospital, The Tazuke Kofukai Medical Research Institute

A 47-year-old man presented with left shoulder pain and muscle weakness in the left limbs on November 2017. On the next day, he experienced dysesthesia of the right limbs and hypohidrosis of the left limbs and developed thermal hypoalgesia in right side of body and muscle weakness of the left upper and lower limbs progressed. He was diagnosed with acute myelitis and Brown-Séquard syndrome, based on cervical MRI scan. Muscle strength improved after steroid therapy and plasma exchange. He experienced complications of intraabdominal abscess in the right side during immunological therapy, although he only had a symptom of left abdominal pain, without pain in the right side. It is noteworthy that abdominal hypoalgesia can be associated with Brown-Séquard syndrome. Characteristically, MRI revealed bilateral lesions at the C3/4 cervical spine level. This report shows that in Brown-Séquard syndrome associated with bilateral spinal lesions, the abdominal visceral sensory pathway, in addition to the somatosensory pathway, could be impaired bilaterally, resulting in aggravation of abdominal hypoalgesia.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2019;59:282-285)

Key words: Brown-Séquard, myelitis, dyshidrosis, abdominal pain