《症例報告》

HTLV-1 脊髄症に伴う高度両下肢拘縮に対する手術治療 —1 例報告—

千葉 英史* 木原 仁* 石井 庄次*
小泉 孝夫* 青木 治人*

Operative Treatment for the Correction of Severe Spastic Contractures in a Patient with HTLV-1 Associated Myelopathy —A Case Report—

Hidefumi CHIBA,* Hitoshi KIHARA,* Shoji ISHII,*
Takao KOIZUMI,* Haruhito AOKI*

Abstract: Patients with HTLV-1 associated myelopathy (HAM) have gradual onset and slowly progressive course of spastic paraparesis with pyramidal signs and bladder dysfunction. In late stages, severe spastic contractures in the lower extremities can disturb walking and even sitting ability. We report a case of HAM, whose deformities were corrected operatively with functional improvement. A 45-year-old woman was referred to us about her disability on October 3, 1996. she first noted gait disturbance in 1986 five years after receiving a blood transfusion, with gradual deterioration. She was diagnosed as HAM in 1987, and a treatment with oral corticosteroids (40 mg of prednisolone daily) was started next year. Although her gait ability improved, her spastic paraparesis took a turn for the worse when she stopped the medication. In 1993, she was unable to walk alone, and two years later, her sitting ability was lost because of adduction-flexion deformities of both hips and flexion contractures of bilateral knees. She underwent an operation on February 24, 1997, involving 1) bilateral adductor-gracilis-iliopsoas tenotomy and obturator neurectomy, 2) release of the right sartorius tendon, and 3) bilateral release of hamstrings. Postoperatively, her ability to sit on a chair improved, and she was discharged home on March 15, 1997. The improvement has been maintained for three years since discharge. In a patient with HAM with severe contractures, operative treatment should be considered as an alternative to improve functional abilities. (*Jpn J Rehabil Med* 2000; 37: 529-532)

Key words: HTLV-1 脊髄症 (HTLV-1 associated myelopathy), 痙性対麻痺 (spastic paraparesis), 関節拘縮 (contracture of joints), 筋解離術 (muscle release), 閉鎖神経切除術 (obturator neurectomy)

はじめに

HAM (HTLV-1 associated myelopathy) は、Osameら¹⁾により1986年に初めて報告された HTLV-1 (human T-cell lymphotropic virus type I) 抗体陽性、および対称性の錐体路障害を示す疾患である。歩りにくい感じやつまづき易さを初発症状とし、歩行

困難など対麻痺症状が緩徐に進行して最終的には筋力低下や筋萎縮のため座位や寝返りが不能になるといわれる²⁾。我々は本症の経過中に、著しい下肢の痙縮と二次障害による関節拘縮のため仰臥位や座位が不能となり、手術治療およびその後のリハビリテーション訓練にて、仰臥位が可能となり座位が安定した1例を経験したので報告する。

1999年12月20日受付, 2000年6月28日受理

* 聖マリアンナ医科大学整形外科教室/〒216-8511 神奈川県川崎市宮前区菅生2-16-1
Department of Orthopaedic Surgery, St. Marianna University of Medicine

症 例

症例：45 歳，女性。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：母（HTLV-1 抗体陰性），姉，子（4 名）は健康。

現病歴：1983 年（31 歳），歯科治療中に出血が止まらず血小板輸血をうけた。1986 年秋頃に走りにくい感じがして，翌年 4 月歩行時頻回につまずくため，近くの病院で脊髄腫瘍を疑われ精査入院し HAM と診断された。1988 年下肢痙性が増強し歩行困難になったが，プレドニゾロン（PSL）40 mg/日の内服治療で以前と同程度に歩行能力は回復した。その後家庭の事情から通院を中断，PSL の内服は中止され，5 年間無治療のまま経過した。1993 年には独歩が不能となり，排尿排便困難でおむつの使用を始めた。膝関節がしだいに屈曲し 1995 年には座位が困難となった。1996 年転居にともない当大学内科を受診し，下肢拘縮の治療目的で当科に紹介され 11 月 20 日入院した。

入院時現症：上肢の運動は良好で筋力の左右差はなく，腱反射は正常であった。下肢では左側での膝関節屈曲伸展，足関節底屈背屈，足趾伸展屈曲運動に自動運動がみられ，徒手筋力検査 2～3 であったほかは筋力 0～1 で，腱反射は著明に亢進しバビンスキー反射は陽性であった。関節可動域は股関節伸展右-100°左-60°，屈曲右 130°左 110°，外転右-10°左 0°，内転は両側で 30°，内外旋は右内旋 30°左 0°の肢位にあった。膝関節可動域は仰臥位で伸展右-135°左-85°，屈曲は両側 150°，足関節可動域は背屈左右と

も 10°，底屈左 0°右 30°であった。他動的伸展に対し痛みを伴う痙縮が起こるため膝関節は絶えず屈曲した「屈曲性対麻痺」の姿勢をとり，仰臥位，座位，寝返りが不能であったが，床上でのいざり移動と臥位から座位への起き上がりは自立し，車椅子移乗には介助を要した。Th 10 以下の温痛触覚は低下し，振動覚・位置覚は正常であった。尿閉で，膀胱機能検査では最大膀胱容量（231 ml）近くになっても尿意や不随意収縮はなく，無収縮排尿筋の状態尿道カテーテルを留置していた。

臨床検査成績：貧血が著しく，赤沈値は亢進し，HTLV-1 抗体は血清で 8,192 倍以上，髄液で 512 倍以上と陽性であった（表 1）。

入院後経過：坐骨神経ブロック（1%カルボカイン 20 ml）や，仙骨硬膜外ブロック（2%キシロカイン 20 ml）を行い痙縮を弱めると膝関節が-90°まで伸展し端座位が可能になったことがわかったが，残る拘縮に対しては筋腱切離が必要と考え，1997 年 2 月 24 日手術を施行した。図 1a, b に全身麻酔下での下肢の拘縮を示した。

手術はまず仰臥位で右長内転筋に沿う皮切で侵入し長・短内転筋，薄筋を切離し，閉鎖神経前枝をみつけて中枢にたどり後枝分岐の近位で切離した。ついで腸腰筋も切離した。さらに縫工筋が緊張し股関節伸展を妨げたので起始部で切離した。左側も同様に行ったが縫工筋の切離は要さなかった。これらの手技により股関節外転伸展は大幅に改善した。体位を腹臥位として両膝窩部を正中皮切で展開し，外側で大腿二頭筋，内側では半膜様筋，半腱様筋，薄筋など緊張している腓

表 1 臨床検査成績

白血球	10,400/mm ³	Na	140 mEq/l
(リンパ球 36%，異常リンパ球 5%)		K	4.8 mEq/l
赤血球	242 万/mm ³	Cl	112 mEq/l
Hb	6.8 g/dl	Ca	8.7 mg/dl
血小板	43.8 万/mm ³	P	4.8 mg/dl
		FBS	86 mg/dl
総蛋白	8.4 g/dl	赤沈値	141 mm/1 時間
A/G 比	0.83	血清 HTLV-1 抗体	8,192 倍以上
ビリルビン	0.2 mg/dl	髄液所見	
GOT	14 IU/l	細胞数	9/3
GPT	5 IU/l	蛋白	51 mg/dl
LDH	287 IU/l	糖	46 mg/dl
BUN	33 mg/dl	Cl	118 mEq/l
クレアチニン	2.5 mg/dl	HTLV-1 抗体	512 倍以上
尿酸	8.5 mg/dl

図1 術前，術後の下肢の肢位

a: 全身麻酔下においても「屈曲性対麻痺」の姿勢をとっている。b: 下肢を伸展すると股関節，膝関節の拘縮は明瞭で，とくに右側に強く認められる。c: 術後4カ月の状態で，車椅子での座位が良好に保持されている。

を全て切離した。この腱切離により膝関節の伸展は両側とも -30° まで可能になった。腓腹筋の緊張は強くなく起始部剥離や脛骨神経からの筋枝切離手技は要さなかった。

術後3日目より他動的関節可動域訓練を開始し，4日目に車椅子のフットレストに両足を置き座れるようになった。理学療法は自宅でのベッド上動作，車椅子への介助移乗，車椅子の自走を想定して行った。術前みられた他動伸展時の疼痛を伴う痙縮が減少して他動的関節可動域訓練が順調に進み，股関節では他動伸展右 -5° 左 0° ，膝関節では他動伸展右 -25° 左 -15° に改善した。仰臥位や自力で端座位保持が可能となり，車椅子座位も安定し3月15日退院した。その後ベッドからの車椅子移乗は軽介助ながら自走も自立した(図1c)。術後3年の現在，進行した下肢筋力低下のため車椅子移乗には再び全介助を要するが，痙縮や拘

縮の痛みがなく車椅子座位での姿勢保持は良好である。

考 察

HAM は HTLV-1 が関与する成人発症の緩徐進行性ミエロパチーとして1986年初めて報告され¹⁾，翌年の厚生省免疫性神経疾患調査研究班の診断指針²⁾では，(1)緩徐進行性でかつ対称性の錐体路障害所見が前景にたつミエロパチー，(2)髄液ならびに血清の抗 HTLV-1 抗体が陽性，の2つが主要事項としてあげられた。本症は成人発症の孤発例が多いとされ，他に母子垂直感染と思われる若年発症群や，輸血の半年から数年後に発症し進行が速い輸血後発症群の存在が判明した²⁾。本例は母親が抗体陰性であり，姉や子に発症のないことから血小板輸血後の発症例と考えられる。

HAM は進行するにつれ四つ這い歩行、いざり移動となる一方、自力排尿も困難となり、やがて筋力低下のため座位や寝返りが不能となる²⁾。麻痺に対して副腎皮質ホルモンはしばしば症状を改善し⁴⁾、本例でもPSL服用の効果と中止による麻痺の悪化がみられた。

本症において理学療法は筋萎縮の防止、関節拘縮の予防に重要な治療手段である。しかし本例では無治療の期間に痙性麻痺と筋萎縮が進み、さらに痛みを伴う痙縮が股関節、膝関節の他動的関節可動域訓練を妨げ二次的拘縮の改善を困難にしていた。神経ブロックで痙縮を抑制すると端座位は可能になったが、股関節内転・屈曲、膝関節屈曲拘縮が強く残ることもわかった。すなわち本例の「屈曲性対麻痺」姿勢は痙縮と拘縮の合併であることがわかったが、このようなHAMの痙縮や二次的に発生した高度の拘縮に対する治療法の記載はみない。我々はこの痙縮と拘縮の治療に脳性麻痺痙直型で行われる腱切離と除神経手術の適応を考えた。

脳性麻痺児の股関節の内転拘縮は内転筋群と薄筋の緊張亢進によるものであり、一方屈曲拘縮の原因は腸腰筋と縫工筋の痙性にあり、膝屈曲拘縮も二次的に関与する^{5,6)}。Keatsら⁷⁾は内転拘縮に対し長・短内転筋、薄筋の解離と閉鎖神経前枝の選択的切除術を発表した。その後屈曲拘縮に対し腸腰筋解離を同時に実施し股関節の筋バランスの調整に十分な効果を得たと述べている⁸⁾。本例でもこれにならい両側で長・短内転筋、薄筋とともに腸腰筋を切離したが、右側では縫工筋は強く緊張し切離の追加を要した。閉鎖神経の処置について歩行のできる脳性麻痺児では、長・短内転筋、薄筋を支配する前枝のみの切離が奨められている⁷⁾が、本例の場合立位と歩行ができないこと、痙縮の再発防止が最大の目的であることから大内転筋を支

配する後枝を含め切離する方法をとった。膝関節屈曲拘縮に対しては屈筋群の緊張した腱を残らず切離した。以上の手術により痙縮は減弱し痛みもなく、関節可動域訓練が実施された結果拘縮の改善も良好であった。麻痺の回復は得られないが、仰臥位、端座位、車椅子座位が可能になり、おむつ交換も容易となり患者および家族の高い満足を得ることができた。

本例のような痙縮・拘縮の高度なHAMの場合、今回行った手術法はリハビリテーションに役立つ有用な一手段であると考え報告した。

文 献

- 1) Osame M, Usuku K, Izumo S, Ijichi N, Amitani H, Igata A, Matsumoto M, Tara M: HTLV-1 associated myelopathy. A new clinical entity. *Lancet* 1986; **i**: 1031-1032
- 2) 納 光弘, 井形昭弘, 松元 實, 宇宿功市郎, 北島 勲, 高橋兼久: HAMの発見とその概説. *神経進歩* 1987; **31**: 727-745
- 3) 井形昭弘, 岩崎祐三, 納 光弘: HTLV-1 associated myelopathy (HAM) に関する全国疫学調査—中間報告—. 免疫性神経疾患調査研究班昭和61年度研究報告書 1987: 309-312
- 4) 納 光弘, 井形昭弘, 小坂健二, 松元 實: 新しい脊髄疾患 HAM—65 症例におけるプレドニゾロン経口投与治療成績. *日本医事新報* 1987; **3281**: 30-34
- 5) Pous JG, Dimeglio A, Adrey J, Goaland C: 痙直性麻痺の股関節. *小児股関節外科* (鈴木良平 訳). 協同医書出版社, 東京, 1978: pp 104-116
- 6) Keats S: 股関節, 膝関節. *脳性麻痺の整形外科手術* (高松鶴吉, 国定寛之 訳). 医歯薬出版, 東京, 1973: pp 108-164
- 7) Keats S: Combined adductor-gracilis tenotomy and selective obturator-nerve resection for the collection of adduction deformity of the hip in children with cerebral palsy. *J Bone Joint Surg* 1957; **39-A**: 1087-1090