《症例報告》

ジストニアを伴うニューロパシックペインの治療経験
—2 症例の報告—中河 庸治* 佐藤 史江* 竹内 直行*
中馬 孝容* 眞野 行生*

Treatment of Dystonia with Neuropathic Pain: A Report of Two Cases

Yoji NAKAGAWA,* Fumie SATO,* Naoyuki TAKEUCHI,*
Takayo CHUMA,* Yukio MANO*

Abstract: Neuropathic pain is defined as pain initiated or caused by a primary lesion or dysfunction in the nervous system. It is found in many disorders including reflex sympathetic dystrophy (RSD) and causalgia. The motor abnormalities of dystonia, tremor and spasm associated with RSD or causalgia have been described in some reports. We reported two patients who had dystonia with neuropathic pain. One patient had fixed dystonic posture with persistent pain of the thigh and calf after hip surgery. This patient exhibited obvious changes of RSD in the foot. Another patient had suffered from Machado-Joseph disease and frequently fell down. This patient had fixed dystonic posture with neuropathic pain of the shoulder and upper arm after trivial trauma. Several therapies involving medication and sympathetic blocks were not effective. We tried to treat them with local blocks of the musculotendinous parts that were painful and dystonic followed by standard physical therapy. With our treatments, satisfactory control of pain and dystonia was achieved. (Jpn J Rehabil Med 2001; 38: 666-670)

Key words: ニューロパシックペイン (neuropathic pain: NP), ジストニア (dystonia), 局所ブロック (local block), カウザルギア (causalgia), 反射性交感神経性ジストロフィー (reflex sympathetic dystrophy: RSD)

はじめに

Bhatia らは、カウザルギアに伴うジストニアを特発性ジストニアと異なる症候群として causalgia-dystonia syndrome と称して報告した¹⁾。しかし、近年、慢性疼痛の発症機序の解明とともに、カウザルギアや反射性交感神経性ジストロフィー (以下 RSD) もニューロパシックペイン (以下 NP) の 1 つとして解釈されている。NP の概念は、疼痛伝達系の一次的神経損傷もしくは機能異常が原因で起こる慢性疼痛を意味する。したがって、慢性疼痛に伴うジストニアは、NP の発症要因となる疼痛感覚伝達系の障害から

運動系情報処理への異常伝達によって引き起こされると考えられている²⁾。今回我々は、ジストニアを伴う NP の症例に対して、疼痛と異常筋緊張を認める筋の筋腱移行部への局所ブロック治療を行った。その結果、NP の緩和とジストニアの軽減が得られ、さらに関節可動域訓練などの理学療法によって患肢運動機能の改善が得られたので報告する。

症 例

1. 症 例 1

29 歳女性。股関節臼蓋形成不全による股関節痛に対して、17 歳時に右臼蓋回転骨切り術を受けた。術

2001 年 3 月 8 日受付, 2001 年 7 月 5 日受理

* 北海道大学大学院医学研究科リハビリテーション医学/〒060-8638 北海道札幌市北区北 15 条西 7 丁目
Rehabilitation Medicine, Hokkaido University, Graduate School of Medicine

後、右下肢内旋肢位歩行となったため、内旋肢位の矯正を目的に平成11年9月に再手術を受けた。内旋肢位は改善したが、著しい股関節内転肢位および足関節内反尖足肢位が持続し、大腿から下腿内側の持続性疼痛および足部のRSD症状により歩行は不能となった。前医にて約6カ月間の治療を受けたが、症状の改善が得られないため当科入院した。

電気生理学的所見として、表面筋電図で大腿筋膜張筋と内側ハムストリングス、前脛骨筋と腓腹筋に異常肢位にて共同収縮を示す異常筋放電を認めジストニアと診断した(図1)。神経伝導速度測定では右内側足

底神経に伝導速度の遅延(SCV: 29.9 m/s)を認めた。GibbonsのRSDスコア³⁾では、右足部の痛覚過敏、浮腫、皮膚色調変化、発汗過多、皮膚温上昇、X線上の骨の萎縮、骨シンチでの集積増加、交感神経ブロック効果(各項目1点)と合計8点でありRSDと診断した。脳MRI、脳波には異常を認めず、MMPI、CMIによる精神分析検査も異常所見は認めなかった。

RSDの治療として局所静脈内ブロックを継続的に実施したが、症状の改善は得られなかった。疼痛と異常筋緊張の緩和を目的に、圧痛点の明らかな内側ハム

図1 症例1

1-a: ブロック前の右下肢ジストニア肢位を示す。股関節外転が制限されている。1-b: ブロック治療後、右下肢の外転が可能となった。1-c: ブロック前の右下肢の表面筋電図。大腿筋膜張筋に緊張を加えると拮抗筋である内側ハムストリングスや下腿の筋群にも持続的な異常筋放電を認める。1-d: ブロック治療後の右下肢の表面筋電図。股関節外転時、内側ハムストリングスの異常筋放電の低下が認められ下腿筋群の活動も低下している。

ストリングス筋腱移行部と内側足底神経に、各々デカドロン2mgと0.5%マーカイン4mlもしくは2mlを混注して局所ブロックを行った。ブロックは週1回の頻度で実施した。ブロック治療開始から4週間後にはジストニア肢位の改善と疼痛の軽減が得られ松葉杖での荷重歩行が可能となった。その後、ブロックの頻度も減少し、疼痛と異常筋緊張の軽減持続により苦痛なく関節可動域訓練や筋力増強訓練が受けられるようになり、4カ月後には独歩が可能となるまでに改善

した。

2. 症 例 2

40歳男性。家族にMachado-Joseph病（以下MJD）を有する。29歳の時に歩行障害が出現し、本人もMJDと診断された。37歳の頃からMJDによる易転倒性を認め、平成12年4月、転倒による外傷を契機に右肩から上腕にかけて疼痛とともに大胸筋、上腕二頭筋の異常筋緊張が出現し、右肩内旋屈曲、肘屈曲肢位をとり上肢の使用が困難となった。前医にて約

図2 症例2

2-a：ブロック前の右上肢ジストニア肢位を示す。肩外転と肘伸展が制限されている。2-b：ブロック治療後、右肩外転と肘伸展が可能となった。2-c：ブロック前の右上肢の表面筋電図。肩外転肘伸展を強制すると拮抗筋である上腕二頭筋や大胸筋に持続的な異常筋放電を認める。2-d：ブロック治療後の右上肢の表面筋電図。肩外転肘伸展時、上腕二頭筋と大胸筋の異常筋放電の低下が認められる。

4カ月間治療を受けたが、症状の改善が得られないため当科入院した。

神経学的所見として、眼球運動障害、四肢腱反射亢進、Babinski 反射陽性、四肢の失調などを認め、脳MRI、SPECT にて大脳、脳幹、小脳の萎縮と血流の低下を認めた。表面筋電図で上腕二頭筋と上腕三頭筋および大胸筋に異常肢位にて共同収縮を示す異常筋放電を認めジストニアと診断した（図2）。

疼痛と異常筋緊張の緩和を目的に上腕二頭筋、大胸筋の筋腱移行部に、週1回の頻度で局所ブロックを継続した。また、棘上筋および三角筋に筋萎縮を認めるとともに肩甲上切痕部（肩甲上神経）と quadrilateral space（腋窩神経）に圧痛点を認め、同部位の絞扼性神経障害が疑われたので同部位へのブロックも併用した。ブロック開始後約2カ月で、大胸筋、上腕二頭筋の疼痛および異常筋緊張は軽減し、その後の関節可動域訓練によって肩関節伸展および回旋中間位の保持、肘関節伸展が可能となった。

考 察

末梢性の NP の発症機序としては、遠心性-求心性線維の非生理的な結合、求心性知覚神経のアドレナリンレセプターの変化、脊髄後角での A β 線維から疼痛伝達系への側副路形成、末梢神経の異所性インパルスの伝達、神経損傷部位や後根神経節での交感神経—一次求心性線維の結合などが認められている⁴⁾。

NP に伴うジストニアの発症機序として、脊髄レベルにおいて後索からの感覚入力が直接的または脊髄介在ニューロンを介して脊髄前角細胞に影響を与えると考えられている²⁾。また、罹患部位が多巣性に広がる機序として、Jankovic らは、中枢への異常な感覚入力の継続によって、運動関連領野の機能的障害が他の部位の支配領域に広がるためであると述べている⁵⁾。

NP の代表的疾患である RSD の診断項目に運動障害は含まれていないが、RSD の 25~50% の症例に局所的なジストニアや振戦などが認められるとの報告もあり決して希な徴候とはいえない⁶⁾。我々の症例では、大腿部の持続性疼痛と異常筋緊張に引き続いて足部の RSD 症状が認められた。これは、RSD の特徴的な症状が四肢の末梢で認められることが多く近位部での診断が困難であったためと考えられる。症例2は、MJD の症例であり原疾患によるジストニアの発症も疑われた。しかし、症状の発症機転が転倒による外傷

であることや症状の局在性から NP に伴うジストニアと診断したが、交感神経の異常所見は明らかでなく RSD の診断には至らなかった。

治療に関しては、NP もジストニアも共に確立した治療法があるわけではなく、症状に合わせて、薬物療法やブロック治療、リハ治療を組み立てることが重要であり、カウンセリングが必要な場合もある。しかし、本症におけるジストニアの出現が、NP を発端として惹起されることから NP の治療を初期治療の基本に据えるべきであろう。

NP に対する薬物治療としては、三環系抗うつ剤のアミトリプテン、イミプラミンなどがよく用いられる。リドカインの静注テストで鎮痛効果のある場合にはメキシレチンの内服も試行される。また、抗痙攣薬として、クロナゼパム、カルバマゼピンやフェニトインなどが有効な場合がある。これらの薬剤はジストニアに用いられる薬剤と重複するものもあるが、抗コリン薬もその効果が認められている。しかし、今回の症例では前述した薬剤を組み合わせ使用したが、NP に対してもジストニアに対しても改善効果は得られなかった。

そこで我々は、局所の疼痛緩和を目的にジストニアを呈する筋肉の筋腱移行部にリドカインとステロイドを用いたブロック治療を試みた。ステロイドの併用は、局所の炎症に対する消炎効果を期待して用いた。一方、局所ブロック法としてリドカインとエタノールを用いた muscle afferent block (MAB) は、四肢の痙縮に対して有効であるとの報告もあるが⁷⁾、慢性疼痛に対しての適応は述べられていない。筋腱移行部へのブロック効果の機序としては、 α - γ coactivation の抑制による主動筋の筋緊張抑制⁷⁾、ゴルジ腱器官からの Ib 求心線維の遮断による拮抗筋の筋緊張抑制、疼痛遮断による感覚-運動系回路への刺激抑制が働いたものと推察する。

リハ治療に関しては、ブロック治療によって疼痛と異常筋緊張がコントロールされてからは、関節可動域訓練や筋力増強訓練などのリハ治療に対する患者の訓練姿勢に積極性が認められ、それに伴って患肢の関節可動域の拡大、筋力の改善が得られた。自験例ではレーザーやホットパック、経皮的電気刺激などの物理療法による疼痛治療はほとんど効果が得られなかったが、患肢の運動機能の改善を図るためには理学療法や作業療法を中心としたリハ治療は不可欠であり、その

効果を十分に引き出すためにも今回のブロック治療は非常に有用な方法であったと思われる。

文 献

- 1) Bhatia KP, Bhatt MH, Marsden CD: The causalgia-dystonia syndrome. *Brain* 1993; **116**: 843-851
- 2) Schott GD: The relationship of peripheral trauma and pain to dystonia. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1985; **48**: 698-701
- 3) Gibbons JJ, Wilson PR: RSD score: criteria for the diagnosis of reflex sympathetic dystrophy and causalgia. *Clin J Pain* 1992; **8**: 260-263
- 4) Bennett GJ: An animal model of neuropathic pain: a review. *Muscle Nerve* 1993; **16**: 1040-1048
- 5) Jankovic J: Post-traumatic movement disorders: central and peripheral mechanisms. *Neurology* 1994; **44**: 2006-2014
- 6) Veldman PH, Reynen HM, Arntz IE, Goris RJ: Signs and symptoms of reflex sympathetic dystrophy: prospective study of 829 patients. *Lancet* 1993; **342**: 1012-1016
- 7) Mezaki T, Kaji R, Hirota N: Treatment of spasticity with muscle afferent block. *Neurology* 1999; **53**: 1156-1157