

症例報告

硬膜外自家血注入法が奏功した外傷性頸部症候群の2例

堀 越 徹, 渡 辺 新, 橋 爪 和 弘
橋 本 幸 治, 貫 井 英 明, 梅 田 貴 子¹⁾

山梨大学医学部脳神経外科,¹⁾放射線科

要 旨: 外傷性頸部症候群2例に対し, 腰椎硬膜外自家血注入法 (EBP) を施行した。症例1は, 事故後12年間遷延する頭痛, 頸部痛, 四肢しびれ感, 耳鳴, 視力低下を訴える65歳, 女性で, EBP後, 痛みとしびれが消失した。症例2は, 2年間続く頭痛, 頸部痛, 左上下肢しびれ感, 耳鳴を訴える29歳, 女性で, EBPにより, 痛みが消失した。2例とも, 頭部および脊椎MRI上, 有意な所見はなかったが, RI脳槽撮影で, RIの早期膀胱貯留を認めたため, 髄液の漏出があるものと考えた。難治性の外傷性頸部症候群では, 潜在性の髄液漏も考慮する必要があると思われる。

キーワード 低髄液圧症候群, 硬膜外自家血注入法, 外傷性頸部症候群

はじめに

脊髄硬膜外腔に自家血を注入する方法 (epidural blood patch : EBP) は, 以前より硬膜穿刺後頭痛の治療に用いられてきた¹⁾。硬膜穿刺後頭痛は, 穿刺部位に生じた硬膜の裂孔から, 持続的な髄液の漏出が起こることが原因と考えられており, EBPの効果は, 硬膜外に注入された血液が髄液漏出を一時的に遮断し, 裂孔を治癒に向わせるためと推定されている。近年, 特発性低髄液圧症 (spontaneous intracranial hypotension : SIH) と呼ばれてきた原因不明の病態も, 同様の病態として注目され, EBPの治療効果が報告されるようになった^{2,3)}。このような髄液漏出状態では, 患者が立位をとると, 浮力を失った脳が下方に牽引され, 症状を起こすと考えられている。特徴的な起立性頭痛の他に, 脳神経症状, 聴力障害, 視力障害, 意識障害, 精神症状など多彩な症状も生じ

る⁴⁻⁹⁾。そして, SIH患者の中には, 重量物の挙上, ジェットコースター搭乗, カイロプラクティック治療, エアロピクス, 激しい咳など, 軽微な力学的負荷が発症に先行した例も報告されている¹⁰⁻¹³⁾。

一方, 頭頸部外傷後に様々な愁訴が持続する病態は, 外傷性頸部症候群, 世間では, いわゆる「鞭打ち症」として, よく知られている。本病態の一部には, 耳鳴, めまい, 眼調節障害, 発汗異常などを伴うものがあり, 頸部自律神経系の機能異常が関与すると言われているが, メカニズムは十分解明されていない。難治性で, 単一の原因では説明のつかない多彩な症状が遷延することから, 精神的, 心身症的な問題と解釈される場合も少なくない。しかし, 多彩な症状を伴う頸部痛, 頭痛は, SIHの症状に酷似している。したがって交通事故の衝撃が脊髄硬膜の裂孔を生じ, 慢性的な髄液漏出を起こしている可能性も否定できない。我々は, RI脳槽撮影において髄液漏出の疑われた外傷性頸部症候群2症例に対し, EBPによる治療を試みたので報告する。

〒409-3898 山梨県中巨摩郡玉穂町下河東1110

受付: 2003年8月7日

受理: 2003年9月3日

症例報告

症例1 (65歳 女性)

53歳時、玉突き追突事故に遭遇した。衝突時、一瞬、眼前白色となり、直後より、四肢のしびれ、脱力が出現し、立てない状態となったという。ステロイド投与、牽引など種々の治療が行われ、脱力は徐々に改善したが、頸部痛、頭痛、手足のしびれ感、めまい感、耳鳴が残存した。他医にて、CT、MRIなどを施行されるも異常は指摘されず、不全頸髄損傷と診断されていた。また事故直後から、目のぼやけを自覚していたが、その後数年で、徐々に視力が低下していった。症状には波があるが、頭痛、頸部痛は安静により軽減するため、患者は臥床がちの生活を強いられていた。来院時、神経学的には、右眼視力0.01、左眼視力眼前手動弁、両肘部より末梢、大腿部より末梢のしびれ感を訴えるも、左前頸部のみに痛覚低下を認めた。手関節の背屈掌屈筋力は両側で低下 (MMT 4/5)、握力は右 14 KgW 左 4 KgW で、腱反射は両側上腕三頭筋で減弱していた。頸椎可動域の制限なく、左側屈時に後頸部痛が出現するも、Jackson 徴候、Spurling 徴候とも陰性であった。頭部および頸腰椎 MRI 上、有意な所見は認められず、低髄液圧症に特徴的とされる硬膜のびまん性増強効果、矢状断像における小脳扁桃の下垂などもなかった。髄液圧は 120 mm 水柱と正常範囲にあり、Queckenstedt 試験で圧上昇を認め、髄液所見も正常であった。¹¹¹In-DTPA を用いた RI 脳槽撮影では、1 時間後の撮影で RI の膀胱内貯留像が陽性で、24 時間後の撮影でも頭蓋冠への RI 移行が不良であった。(Fig. 1) 髄液漏出部位は明らかでなかったが、上記所見は脊髄部において RI の髄液から血流への移行が促進されている状態であり、髄液漏を示唆する所見と考えられた。EBP は腰椎 L2/3 レベルより施行し、静脈血とヨード造影剤混合液、約 40 ml を注入した。注入中、頭痛とともに、一過性に聴力が低下した。EBP 後は数日間の安静と補液を行い、退院した。頭痛、頸部痛は EBP 直後より消失し、安静解除後も、天候悪

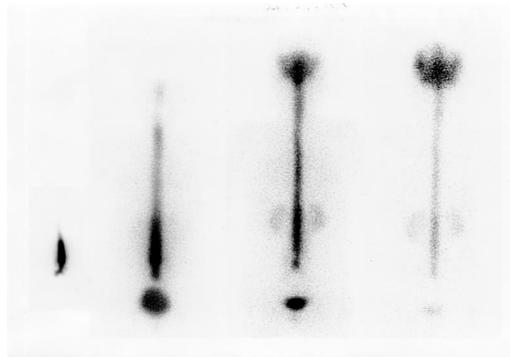


Fig. 1 Radioisotope cisternogram of Patient 1. Radioisotope images of immediately (left), 1 hour, 5 hours, and 24 hours (right) after injection of ¹¹¹In-DTPA. RI was already detected in the urinary bladder 1 hour after the intrathecal administration. Transport of RI in the high cranial convexity is absent even 24 hours after the injection.

化時にも再燃することはなかった。また、四肢のしびれ感も消失し、歩行も容易となった。耳鳴、視力低下には変化はなかった。

症例2 (29歳, 女性)

2年前、停車中に追突事故に遭遇した。事故後より頭痛、頸部痛、左半身のしびれ感、舌のしびれが出現。さらに、吐き気、めまい感、立ちくらみ、耳鳴、顎関節痛も加わった。頭部 MRI など施行されるも、画像上、異常は指摘されず、他医にて頸椎捻挫と診断され投薬を受けた。しかし、事故後2年を経ても、症状の改善がないため、当科を受診した。頭痛は、日によって波があるものの、起立時に増悪し、臥位にて軽快するという。神経学的には、運動感覚障害は明らかでなく、自覚的に左前腕尺側から環・小指、左足にしびれ感を訴えるのみであった。腱反射は下肢にてやや減弱していたが左右差なく、病的反射は出現しなかった。頸部可動域に制限なく、右側屈時に痛みが誘発された。Weber 試験にて左偏倚。頭部、頸部 MRI は、軸位断像・矢状断像とも異常所見はなかった。RI 脳槽撮影では、注入後1時間で、膀胱への RI の集積を認めたが、硬膜からの漏出部位は

明らかでなく、脳表への RI 移行には異常はなかった。(Fig. 2) 髄液は正常で初圧 120 mm 水柱, Queckenstedt 試験により速やかな圧上昇を認めた。RI 脳槽撮影所見より髄液漏を疑い, EBP を施行, 30 ml の血液と造影剤を腰椎 L2/3 より注入した。注入後には軽度の腰痛が出現したのみであり, 数日の安静ののち退院した。頭痛, 頸部痛は消失し, 手のしびれ感, 耳鳴は残存した。現在, 通常の家生活に戻っているが, 痛みの再発はない。

考 察

従来, 報告されてきた SIH では, MRI 上の典型的な所見, すなわち硬膜のびまん性増強効果, 脳の下垂や硬膜下水腫などが強調されてきた²⁻¹²⁾。しかし, これらの所見はすべての SIH 患者に見られる訳ではない^{14,15)}。今回, EBP が著効した 2 例では, 矢状断撮影を含めた MRI 上, 明らかな異常所見は認められず, RI 検査のみが異常であった。これらの症例が髄液漏を有していたと仮定した場合, MRI 上所見を呈さない理由がいくつか推察される。ひとつは時間経過の問題である。MRI 上所見を有する報告例の多くは, 発症から比較的短期間に医療機

関を受診し, 診断が確定しているのに対し, われわれの 2 例では, 2 ~ 12 年経過してから受診している。MRI 上の硬膜増強効果は, 髄液量低下を代償するための硬膜血管の怒張であると考えられている¹⁶⁾。慢性期においては, なんらかの別の代償機構により, 硬膜血管の怒張が緩和され, MRI 上の所見が正常化されている可能性もある。我々の症例でも, 受傷早期にも MRI が行われていた。しかし, 造影 MRI でなければ, 硬膜の異常所見を検出することは困難である。また, 小脳扁桃下垂に代表される脳の下垂所見は, 通常の軸位断では診断不能であり, 頭部矢状断撮影が必須である。このような検査は, 通常の外傷の患者には施行されないため, 看過されてきた可能性もある。第二に, 髄液漏出量の問題である。漏出量の多い例では, 症状も激烈で, MRI 上の所見も明確であると考えられる。一方, 漏出量の少ないものは, MRI など画像上の所見は乏しいのかもしれない。

われわれの 2 例では, RI 注入後, 1 時間という早期から膀胱への RI 集積が認められた。一般に, 髄液は脳表のくも膜顆粒において静脈に吸収されると考えられている。髄液中に投与された ¹¹¹In-DTPA も同様に, 脳表に達してから静脈血へ移行し, 腎で急速に濾過されて尿中に排泄される。従って, RI が脊髄硬膜管内にとどまっている時期に膀胱に RI が排泄されるのは異常であり, 脊髄レベルで髄液から静脈血への RI の移行があると言える。もっとも, 検査による穿刺部位から RI が漏れるという逆説的な要因も否定はできない。硬膜外に漏出した RI は硬膜外静脈で血液中に移行していく。また, RI の尿への早期移行は, 腰部での髄液吸収が異常に亢進している (hyperabsorption) という仮説的な状態でも説明は可能である¹⁷⁾。脊髄においても spinal arachnoid villi という髄液吸収機構が存在していることは, 動物実験などで証明されている¹⁸⁾。しかし, これらを除外すれば, RI の膀胱への早期貯留は, 脊髄硬膜からの髄液の漏出を間接的に示唆する所見で

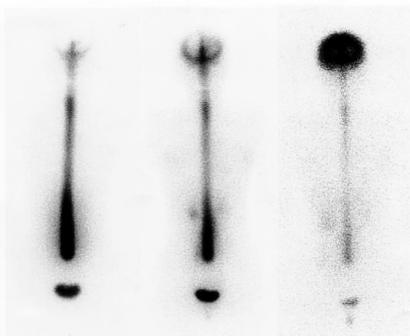


Fig. 2 Radioisotope cisternogram of Patient 2. Radioisotope images of 1 hour (left), 5 hours (center), and 24 hours (right) after the intrathecal injection of ¹¹¹In-DTPA. The tracer was densely detected in the bladder 1 hour after the administration.

ある, と解釈するのが一般的である¹⁹⁾。髄液の漏出は低髄液圧を呈すると思われがちであるが, 実際にすべてが低髄液圧を呈する訳ではなく, 髄液圧が正常であっても髄液漏は否定できないというのが最近の見解である¹⁵⁾。これは, 種々の代償機構により, 髄液圧そのものは正常化するためであると解釈されている。われわれの2例でも, 腰椎穿刺時の圧は正常範囲であった。

以上の点から, われわれの症例では, おそらく腰椎付近で慢性的な髄液漏出が生じていたと推定される。そして, 種々の症状の一部は髄液漏出によって生じており, 腰椎部へのEBPによって軽快したと考えられる。しかし, EBPの具体的な作用機序については解明されていない点も多く, EBPが有効であったからといって, 髄液漏があったと単純に結論するのは早計かも知れない。例えば, 脊髄硬膜での髄液の吸収亢進が病像の本態であるとするならば, EBPが硬膜外静脈圧を高めることによって, 圧勾配に依存する髄液の吸収を抑制する, という仮説をとることも出来る。LevineらはSIHの本態は, 髄液量低下に伴う腰部硬膜のコンプライアンスの増大であり, 立位においては腰部硬膜管が拡張し, 髄液の下方移動が生じるために症状を呈すると論じている²⁰⁾。この場合, EBPは硬膜管の拡張を力学的に抑制することで急性効果を生じると考えられる。また, EBPによる, 脊髄硬膜あるいは周囲組織への物理的・化学的刺激が, なんらかの疼痛抑制効果を発生させ, 慢性疼痛サイクルを遮断すると考えることも可能であろう。

外傷性頸部症候群の多くは, 受傷直後に安静を守ることで軽快する病態である。しかし, 少数の例では, 多彩な症状を呈し, 遷延化する。これらの中には, 本症例のようにEBPが奏功する例も含まれていると考えられるが, 典型的な低髄液圧症例を除けば, 診断の決め手となる指標に乏しい。国際頭痛学会による髄液漏性頭痛の診断基準のひとつは, 立位15分以内に増悪し, 臥位にて30分以内に軽快する頭痛であ

る。しかし, 頸椎椎間板や頸椎椎間関節に由来する頭痛や頸部痛でも体位性の変化を示し, 鑑別上問題となる。脊髄症や神経根症では説明のつかない, 種々の症状を呈する場合も参考になるが, これらは他覚的所見に乏しいことが多く, また, 慢性疼痛患者特有の精神的修飾も加わりうるので, 評価が難しい。われわれは, 外傷性頸部症候群患者のなかで, 1) 疼痛以外に羞明感, 耳閉感, 顔面や四肢のしびれ, Romberg徴候など多彩な症状を呈する, 2) 画像所見からは症状を説明しがたい, 3) 症状は体位性に变化し, 臥位にて軽減する, 4) 症状が強く, 日常生活の維持が困難である, 5) 経過が年余にわたり遷延しているもの, にはRI脳槽撮影を行っている。われわれの症例で見られたRIの早期膀胱貯留をもって, 髄液漏出と診断できるかという点については, 前述のごとく手技上の問題が潜んでいる可能性もあり, 更なる検討が必要である。また, RI検査が正常でも, 髄液漏を否定できるかという問題もある。したがって, EBPの適応について現状では, 症状, 髄液圧, 髄液所見, MRIやRI検査所見などから総合的に判断せざるをえない。しかし, 心身症的とも言える多彩な愁訴を有する患者に対し, 今一度, 髄液漏などの器質的病態を考えて検査を進めることは, 慢性疼痛に苦しむ患者を救う上で, 大切であると考えらる。

文 献

- 1) Ylonen P, Kokki H: Epidural blood patch for management of postdural puncture headache in adolescents. *Acta Anaesthesiol Scand*, **46**: 794-798, 2002.
- 2) Usui T, Saito S, Goto F: Spontaneous intracranial hypotension treated with a cervical epidural blood patch. *Eur J Anaesthesiol*, **20**: 500-502, 2003.
- 3) Waguri N, Tomita M, Hayatsu K, Okamoto K, Shimoji K: Epidural blood patch for treatment of spontaneous intracranial hypotension. *Acta Anaesthesiol Scand*, **46**: 747-750, 2002.
- 4) Hong M, Shah GV, Adams KM, Turner RS, Foster NL: Spontaneous intracranial hypotension causing reversible frontotemporal dementia. *Neurol-*

- ogy, **58**: 1285–1287, 2002.
- 5) Arai M, Takada T, Nozue M: Orthostatic tinnitus, an otological presentation of spontaneous intracranial hypotension. *Auris Nasus Larynx*, **30**: 85–87, 2003.
 - 6) Beck CE, Rizk NW, Kiger LT, Spencer D, Hill L, et al.: Intracranial hypotension presenting with severe encephalopathy, Case report. *J Neurosurg*, **89**: 470–473, 1998.
 - 7) Pleasure SJ, Abosch A, Friedman J, Ko NU, Barbaro N, et al.: Spontaneous intracranial hypotension resulting in stupor caused by diencephalic compression. *Neurology*, **50**: 1854–1857, 1998.
 - 8) Ferrante E, Savino A, Brioschi A, Marazzi R, Donato MF: Transient oculomotor cranial nerve palsy in spontaneous intracranial hypotension. *J Neurol Sci*, **42**: 177–179, 1998.
 - 9) Pakiam AS, Lee C, Lang AE: Intracranial hypotension with parkinsonism, ataxia, and bulbar weakness. *Arch Neurol*, **56**: 869–872, 1999.
 - 10) Schevink WI, Ebersold MJ, Atkinson JL: Roller-coaster headache due to spinal cerebrospinal fluid leak. *Lancet*, **347**: 1409, 1996.
 - 11) Beck J, Raabe A, Seifert V, Dettmann E: Intracranial hypotension after chiropractic manipulation of the cervical spine. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*, **74**: 752–755, 2003.
 - 12) Sugino T, Matsusaka Y, Mitsuhashi Y, Murata K, Sakaguchi M: Intracranial hypotension due to cerebrospinal fluid leakage detected by radioisotope. *Neurol Med Chirur*, **40**: 404–407, 2000.
 - 13) Bai J, Yokoyama K, Kinuya S, Konishi S, Michigishi T, et al.: Radionuclide cisternography in intracranial hypotension syndrome. *Ann Nucl Med*, **16**: 75–78, 2002.
 - 14) Schoffer KL, Benstead TJ, Grant I: Spontaneous intracranial hypotension in the absence of magnetic resonance imaging abnormalities. *Can J Neurol Sci*, **29**: 253–257, 2002.
 - 15) Chung SJ, Kim JS, Lee MC: Syndrome of cerebral spinal fluid hypovolemia, clinical and imaging features and outcome. *Neurology*, **55**: 1321–1327, 2000.
 - 16) Mokri B: The Monro-Kellie hypothesis, application in CSF volume depletion. *Neurology*, **56**: 1746–1748, 2001.
 - 17) Molins A, Alvarez J, Sumalla J, Titus F, Codina A: Cisternographic pattern of spontaneous liquoral hypotension. *Cephalalgia*, **10**: 59–65, 1990.
 - 18) Bozanovic-Sosic R, Mollanji R, Johnston MG: Spinal and cranial contributions to total cerebrospinal fluid transport. *Am J Physiol Regul*, **281**: R909–916, 2001.
 - 19) Benamor M, Tainturier C, Graveleau P, Pierot L: Radionuclide cisternography in spontaneous intracranial hypotension. *Clin Nucl Med*, **23**: 150–151, 1998.
 - 20) Levine DN, Rapalino O: The pathophysiology of lumbar puncture headache. *J Neurol Sci*, **192**: 1–8, 2001.

Two Cases of Whiplash Associated Syndrome Successfully Treated with Lumbar Epidural Blood Patch

Toru Horikoshi, Arata Watanabe, Kazuhiro Hashizume, Kouji Hashimoto,
Hideaki Nukui, and Takako Umeda¹⁾

Department of Neurosurgery and ¹⁾Radiology, University of Yamamashi

Abstract: We reported 2 patients with whiplash-associated syndrome who were successfully treated with lumbar epidural blood patch (EBP). A 65-year-old woman suffered for more than 12 years from headache, nuchalgia, numbness of the limbs, tinnitus and visual disturbance following a traffic accident. After EBP, her headache, nuchalgia, and numbness completely disappeared, however, both tinnitus and visual disturbance remained. A 29-year-old woman had headache, nuchalgia, tinnitus and numbness of the left extremities. Her pain was relieved rapidly after EBP but tinnitus and numbness continued. Neither patient showed definitive abnormalities of intracranial hypotension or other lesions on magnetic resonance images of the head and cervical spine. However, early detection of the urinary bladder on RI cisternogram was demonstrated 1 hour after the intrathecal injection of ¹¹¹In-DTPA. This finding suggested leakage of cerebrospinal fluid from the spinal dural sac. We should be aware of possible CSF leakage in patients with long-lasting headache and related symptoms after traffic accident.

Key words: intracranial hypotension, epidural blood patch, whiplash associated syndrome