

発熱・尿閉を主訴とした急性散在性脳脊髄炎の1例

寺尾 俊哉, 林 哲夫, 吉永 敦史, 大野 玲奈
石井 信行, 諸角 誠人, 山田 拓己
埼玉医科大学総合医療センター泌尿器科

A CASE OF GRADE FEVER ACUTE DISSEMINATED
ENCEPHALOMYELITIS EXHIBITING URINARY
RETENTION AND HIGH GRADE FEVER

Toshiya TERAOKA, Tetsuo HAYASHI, Atsushi YOSHINAGA, Nobuyuki ISHII,
Rena ONO, Makoto MOROZUMI and Takumi YAMADA
The Department of Urology, Saitama Medical Center, Saitama Medical School

Acute disseminated encephalomyelitis is an acute inflammatory demyelinating disorder of the central nervous system and patients usually present with signs of meningitis, depressed levels of consciousness, disorientation and/or motor or sensory deficits, depending on the affected sites. We present an unusual case of acute disseminated encephalomyelitis with the chief complaint of high-grade fever and urinary retention instead of any signs of neurological disturbances. This is the 10th report of this kind of presentation in Japan.

(Hinyokika Kiyo 53 : 311-314, 2007)

Key words : Urinary retention, Acute disseminated encephalomyelitis, High grade fever, Steroid pulse therapy

緒 言

泌尿器科外来に尿閉を主訴に来院する患者の中には、他科領域の基礎疾患、とりわけ神経疾患を有する患者がいるが、診断・処置のおくれにより、予後に影響を与える場合がある。われわれは、尿閉と発熱を主訴とし、当科に緊急入院後、意識障害、下肢麻痺をきたした急性散在性脳脊髄炎の症例を経験した。早期のステロイドパルス療法により、後遺症をほとんど残すことなく治療できた。

症 例

患者：58歳，男性

主訴：尿閉，発熱

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：2005年12月18日頃から感冒様症状が出現し、風邪薬を服用していたが12月25日に尿閉および40度の発熱をきたし、12月26日当院救急外来受診し、同日当科に緊急入院となった。

入院時現症：身長 171 cm，体重 57 kg，血圧 120/80 mmHg，脈拍90，整，体温 40°C，意識は清明。下腹部に膨隆を認めた。導尿にて 500 ml の尿の流出を認めた。体格・栄養は良好。前立腺は2.5横指，中心溝をふれ，弾性硬であった。

入院時検査所見：血液一般，血液生化学検査で異常

を認めなかった。血清学的検査で単純ヘルペス，水痘ヘルペス，サイトメガロウイルス，EBウイルス，風疹，麻疹ウイルスの感染を有意に示唆するものはなかった。

尿検査：PH，蛋白（1+），糖（-），沈渣：RBC 1~4/HPF，WBC 1未満/HPF。

血液培養所見・尿培養所見：陰性。

入院後経過：前立腺の硬結所見および圧痛は認めないものの前立腺の肥大所見，発熱，尿閉を主訴としたことから急性前立腺炎を疑い，抗生物質の点滴， α 1ブロッカーを投与した。入院時は自尿を認めたが，入院後3日尿閉が再度出現した。このため間欠導尿を開始した。しかし，39~40°Cの稽留熱は下降せず，入院後10日後から傾眠傾向および下肢の麻痺が出現したため当院神経内科に尿閉の原因に関する神経学的疾患の有無に関してコンサルトした。

神経内科受診時の神経学的所見：JCS II-3 左 S1/2 レベルの感覚麻痺，左右深部腱反射の低下，左優位の近位筋優位の脱力を認めた。

画像検査所見：MRI 所見では脳髄質にガドニウムにより造影される点状の T2 高信号像を大脳白質に認めた。また脊髄 MRI では Th12 にガドニウムにより造影される T2 強調画像で高信号像をしめす病変を認めた (Fig. 1)。

髄液所見：初圧；210 cm H₂O，血性（-），髄液細

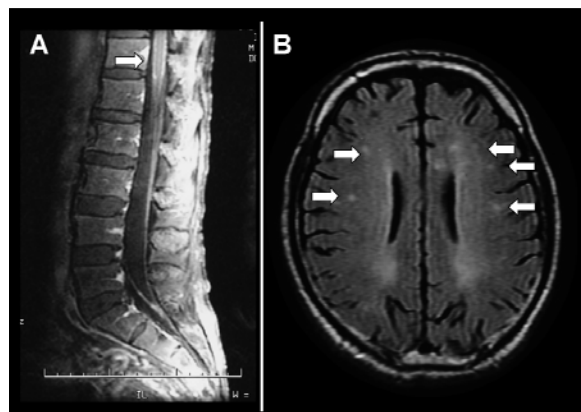


Fig. 1. MRI revealed high intensity area in T2 weighted sequences (demyelinated lesions) in Th12 in spinal cord (A) and in deep white matter (B).

胞診；クラス1，細胞数； $248/\text{mm}^3$ ($<10/\text{mm}^3$)，髄液蛋白；188 mg/dl (15～45 mg/dl)，髄液糖；52 mg/dl (40～80 mg/dl)，髄液 Cl；116 mEq/L (118～

130 mEq/L)

神経学所見からは馬尾症候群による尿閉が考えられた。髄液所見で髄液細胞数，髄液蛋白の増加を認め，神経の脱髄性疾患やウイルス感染が疑われた。さらに，MRIの所見から馬尾症候群の原因として急性散在性脳脊髄炎が強く疑われた。このためステロイドパルス療法を行った。ステロイドパルス療法はソルメドロール 500 mg/日を3コース施行した。2コース目のステロイドパルス療法後髄液中の白血球，髄液蛋白の再上昇を認めたため (Fig. 2) ステロイドパルス療法後を1コース追加した。臨床症状は2カ月ではほぼ消失した (Fig. 3)。リハビリ終了後7カ月経過するが，わずかな下肢のしびれ，および残尿はないものの，排尿困難を軽度認め， $\alpha 1$ ブロッカーを投与している。

考 察

急性散在性脳脊髄炎 (acute disseminated encephalomyelitis, 以下 ADEM と略) は先行するウ

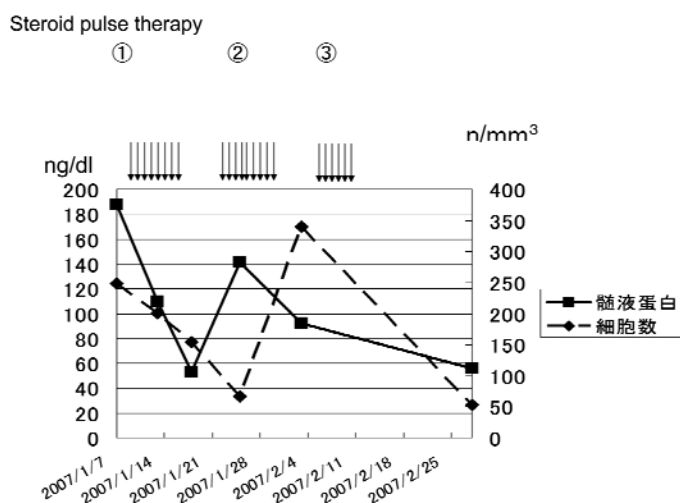


Fig. 2. The correlation between steroid pulse therapies and protein, cells in cerebrospinal fluid. 1st 2nd.

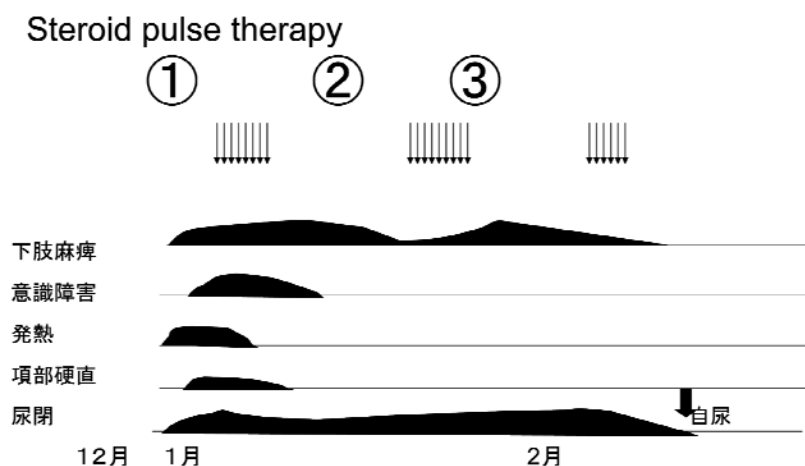


Fig. 3. Steroid pulse therapies were performed (3 courses 1st: 8 days, 2nd: for 9 days, 3rd: 6 days). Symptoms disappeared after 3 courses of steroid therapy.

イルス感染ないし, ワクチンの接種後3~21日後に発症する急性の炎症性脱髄性疾患である. この既往に加え MRI で主として白質深部で, T2 強調画像やガド

Table 1. Infection preceding and vaccines associated with ADEM

A: Infections	
Viral	
• Measles	
• Coronavirus	
• Coxsackie B	
• Parainfluenza virus	
• Mumps	
• Influenza A or B	
• Hepatitis A and C	
• Herpes Simplex	
• Human herpes virus 6	
• Varicella-zoster virus	
• Rubella virus	
• Epstein-Barr virus	
• Cytomegalovirus	
• HIV	
Others	
• Chlamidia	
• Legionella	
• Mycoplasma pneumoniae	
• Streptococcus	
• Borrelia burgdorferi	
B: Vaccines	
• Hepatitis B	
• Rubella	
• Japanese B encephalitis	
• Measles	
• Mumps	
• Pertussis	
• Polio	
• Tetanus	
• Influenza	
• Rabies	

ニウムで造影される脱髄性疾患を認めた場合 ADEM を疑う^{1,2)}. 原因となるウイルス感染は多岐にわたる (Table 1) ので決して頻度は少ないと思われる^{3,4)}. しかし, 本症例のように発熱・尿閉を主訴とした症例は本邦で自験例を含め10例のみで, 泌尿器科で遭遇する機会はきわめて少ない (Table 2). この理由として, 成人例では発熱を主訴とする症例が少なく, また脊髄にまで病変が及ぶ症例は ADEM の1部分にすぎないことが考えられる. Schwarz らの報告では成人例では26例中4例 (15%) で発熱を認め, 脊髄病変を伴う例は同様に26例中4例 (15%) と低頻度であった⁵⁾. さらに尿閉や四肢麻痺, 対麻痺を起こす症例は稀なため ADEM の一亜系として, とくに Isolated Transverse Myelitis という概念で区別している報告もある^{3,6)}. 本症例は, はじめ尿閉, 次いで下肢の対麻痺をおこし, Isolated Transverse Myelitis と考えられる像であった. 後に上行性に病変が及び意識障害をきたした.

ADEM の発症は免疫性の機序が考えられる. その発生機序は, 1) 炎症により破壊された中枢神経の組織 (myelin basic protein) が脳脊髄関門からもれ, これに対する抗体や細胞性免疫を介して myelin を破壊する結果, 中枢の脱髄性疾患の原因となる, 2) ウイルスなどの抗原がミエリンのアミノ酸と構造的に類似しており, 抗原が dendritic cell を介して免疫を賦活した結果, 中枢神経中のミエリンを攻撃し脱髄性疾患を引き起こすとする説がある³⁾. 免疫性疾患と考えており, ステロイドのパルス療法が治療の中心となる⁷⁾. ステロイドには, 1) ADEM による脳浮腫の抑制, 2) 免疫反応をおさえ脱髄の進行を抑える, 3) 脳脊髄関門を閉じ, あらたな myelin basic protein などの抗原が脳脊髄液などに漏れるのを予防するなどの働きがあると考えられている⁷⁾. したがって, 診断が付き

Table 2. Review of reports: ADEM cases whose chief complaints were fever and urinary retention

報告者	年齢	性別	先行感染	髄液検査	報告年	治療	報告文献
1 伊出ら	36	男性	麻疹	蛋白, 細胞数の上昇	1988	プレドニン少量投与, γ グロブリン	厚木病院医誌
2 山根ら	5	女性	上気道炎	細胞数の増加	1999	ステロイド剤	日本小児科学会雑誌
3 近藤ら	21	男性	感冒様症状	蛋白の増加, 細胞数の上昇	2000	ステロイドパルス, 血漿交換	東京医師会雑誌
4 Tsuru ら	14	男性	風疹	ミエリン塩基性蛋白, 細胞数の上昇	2000	ステロイドパルス	Brain & Development
5 松下ら	29	女性	パラインフルエンザ	ミエリン塩基性蛋白, 細胞数の上昇	2002	プレドニン少量投与, γ グロブリン	ACTA OBST GYNAEC JPN
6 成瀬ら	30	女性	発熱	記載なし	2003	ステロイドパルス	泌尿紀要
7 Sakakibara ら	46	男性	発熱	単核球増加, 蛋白の若干の増加	2005	排尿管理	J Neurol
8 Sakakibara ら	68	女性	発熱	ミエリン塩基性蛋白, 細胞数の上昇	2005	排尿管理	J Neurol
9 Sakakibara ら	34	男性	発熱	蛋白の増加, 細胞数の上昇	2005	排尿管理	J Neurol
10 自験例	58	男性	発熱	蛋白の増加, 細胞数の上昇	2006	ステロイドパルス, 尿路管理	

しだい早期の治療が重要で、早期にステロイド治療を行わない場合中枢性病変が拡大する危険性がある。本症例も抗生剤の点滴が無効であったが、ステロイドパルス療法で劇的に症状の改善を認めた。

本症は通常单相性の疾患である。予後は少数の例外を除き良好で、死亡症例もきわめて稀である^{5,8,9)}。しかし、本症例では1コース目のステロイドパルス療法の後に再燃をきたし、单相性と言いがたい症例であった。ステロイドのwithdrawalにより再発の見られる場合、ADEMの中でも特にMDEM (multiphasic disseminated encephalomyelitis) といわれる¹⁰⁾。このためADEMの治療では最低でも3日間、1 g/dayのステロイドパルス療法を行った後、ステロイドのtaperingを行うケースが多い^{3,4)}。6カ月を過ぎて進行する場合があります。この場合多発性硬化症の疑いが強いとされる。单相性ではない経過をたどった本症例のようなケースでは注意深い経過観察が必要と思われた。

ADEMでは通常脳脊髄液での検査は特異的でないとされ、経過観察に必ずしも向いていない。しかし、脳脊髄液中のIgG、リンパ球、たんぱく質 (myelin basic protein など) の増加が見られる場合があるとされる¹⁾。臨床像と脳脊髄所見が比例する本症例のようなケースは脳脊髄所見が効果判定の上でいいメルクマールになると考えられる。また多発性硬化症では髄液中のoligoclonal bandの出現率がADEMに比較して高い^{3,4)}。症状が再燃した髄液検査所見は再燃時の治療の方向性を考える上で参考となるかもしれない。

結 語

ステロイドパルス療法により著明な改善を認めたADEMの1例を報告した。尿閉の原因の鑑別診断の1つとして念頭に置く必要があると考えられた。

引 用 文 献

- 1) Kesserling J, Miller DH, Robb SA, et al.: Acute disseminated encephalomyelitis. MRI findings and the distinction from multiple sclerosis. *Brain* **113**: 291-302, 1990
- 2) Singh S, Prabhakar S, Korah IP, et al.: Acute disseminated encephalomyelitis and multiple sclerosis. magnetic resonance imaging differentiation. *Australas Radiol* **44**: 404-411, 2000
- 3) Menge T, Hemmer B, Nessler S, et al.: Acute disseminated encephalomyelitis. *Arch Neurol* **62**: 1673-1680, 2005
- 4) Bennetto L and Scoldings N: INFLAMMATORY/POST-INFECTIOUS ENCEPHALOMYELITIS. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* **75**: i22, 2004
- 5) Schwartz S, Mohr A, Knauth M, et al.: Acute disseminated encephalomyelitis: a follow-up study of 40 adult patients. *Neurology* **56**: 1313-1318, 2001
- 6) Sakakibara R, Uchiyama T, Liu Z, et al.: Meningitis-retention syndrome. *J Neurol* **252**: 1495-1499, 2005
- 7) Olaf S and Scott SZ: Pathogenesis, diagnosis, and treatment of acute disseminated encephalomyelitis. *Curr Opin Neurol* **12**: 395-401, 1999
- 8) Stonehouse M, Gupte G, Wassmar E, et al.: Acute disseminated encephalomyelitis: recognition in the hands of general paediatricians. *Arch Dis Child* **88**: 122-124, 2003
- 9) 二階堂弘輝, 津川 毅, 土居俊明, ほか: 急速に脳ヘルニアに陥り、死亡した劇症型急性散在性脳脊髄炎の1例. *小児臨* **57**: 1194-1198, 2004
- 10) Dale RC and Branson JA: Acute disseminated encephalomyelitis or multiple sclerosis: can the initial presentation help in establishing a correct diagnosis? *Arch Dis Child* **90**: 636-639, 2005

(Received on September 19, 2006)

(Accepted on December 12, 2006)