

反射性交感神経性ジストロフィー (RSD) の 骨シンチグラフィ

高山輝彦, 杉原 信*¹, 杉山 誠*²
小野口昌久, 絹谷清剛*³, 利波紀久*³

要 旨

60歳の女性が左手痛・腫脹を主訴に受診し、上顎炎および腱鞘炎と臨床診断された。しかし、手の安静にもかかわらず症状の軽快が不十分である等の臨床経過より反射性交感神経性ジストロフィー (Reflex sympathetic dystrophy, RSD) が疑われた。骨シンチグラフィでは患側の左手に異常集積を認め、RSDに相当した。以上より、骨シンチグラフィはRSDの診断に際し補助検査として有用であった。

はじめに

反射性交感神経性ジストロフィー (Reflex sympathetic dystrophy, RSD) は一肢の広範性・表在性・深在性灼熱痛・血管運動障害・栄養変化および何らかの局所損傷の結果起こる症候群であり、関節の制限または不動を伴うことがある。今回、RSDと思われる症例を経験し、骨シンチグラフィの有用性について検討した。

症 例

症 例: 60歳, 女性

主 訴: 左手の腫脹・痛み

既往歴: なし

家族歴: なし

現病歴: 1月頃より左手～前腕が腫れて痛みを伴うようになった。手を使った時や、踊りの練習をすると肘から手が痛む。整骨院に通ったが軽快しないため、2月23日に整形外科クリニックを受診する。

理学的所見: 上腕骨外側上顆部に圧痛、および手関節の背屈時に痛みを認める。フィンケルシュタインテスト陽性 (フィンケルシュタインテスト: 握りこぶしを作り、母指ごと手首を小指側に曲げると痛みが層強する)。

検査所見: 血液では軽度の高脂血症以外に、CRP, RA反応も含め異常なし

画像診断: 肘 X線写真 (Fig.1 a): 異常なし
手関節 X線写真 (Fig.1 b): 異常なし

臨床診断: 肘と手関節の X線写真はいずれも正常。理学的所見で上腕骨外側上顆部に圧痛、手関節背屈時に痛みを認めることから同部の炎症が疑われ、またフィンケルシュタインテスト陽性より腱鞘炎が疑われ、臨床診断は過剰使用による上顎炎および腱鞘炎であった。

経過観察: 治療として、外用消炎鎮痛剤の投与、

Bone scintigraphy in a patient with reflex sympathetic dystrophy (RSD)

Teruhiko Takayama, Makoto Sugihara*¹, Makoto Sugiyama*², Masahisa Onoguchi, Seigo Kinuya*³, Norihisa Tonami*³

Department of Clinical Radiological Technology, School of Health Sciences, Kanazawa University.

*¹Sugihara Orthopedic Clinic

*²Department of Radiology, Hokuriku Hospital

*³Department of Nuclear Medicine, School of Medicine, Kanazawa University.

金沢大学医学部保健学科 〒920-0942 金沢市小立野5丁目11-80

*¹杉原整形外科クリニック 〒921-8146 金沢市額乙丸町口153番地

*²北陸病院放射線科 〒921-8035 金沢市泉が丘2-13-43

*³金沢大学医学部核医学教室 〒920-8640 金沢市宝町13-1

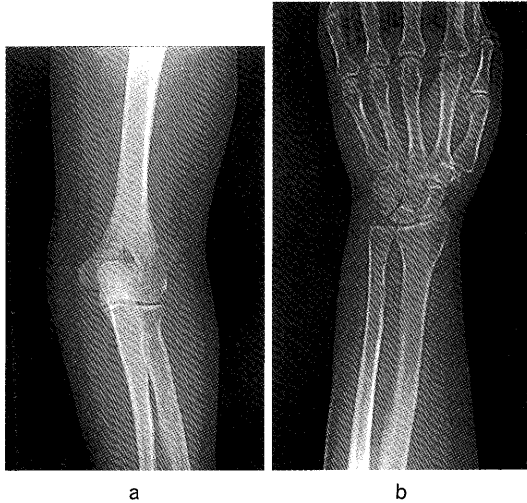


Fig. 1 X-ray graphy shows no abnormality in the left elbow (a) and hand (b).

夜間シーネ固定、および低出力レーザー局所照射が行われた。2月26日には、右手関節部にも同様の症状を訴えたが、3月17日には両手の症状は軽快した。しかし4月4日には症状の悪化を認め、両上腕上顆炎と両手関節部の腱鞘炎を認めた。この間、「調子が良かったので茶碗洗いなど家事を多くした」とのことである。外用消炎鎮痛剤と低出力レーザー局所照射に加え、内服の消炎鎮痛剤を追加した。4月24日に痛みは軽快したが、左手の腫脹は軽快しなかった。5月1日に痛みは軽快したものの、左手の腫脹が持続した。5月22日に左手の腫脹持続等の症状と臨床経過よりRSDが疑われた。すなわち、全体として手の安静にもかかわらず症状の軽快が不十分であった。手のX線写真 (Fig.2) で骨萎縮 (bone dystrophy) を認め RSD と診断し、補助検査として骨シンチグラフィを依頼した。5月28日に^{99m}Tc-MDP (740 MBq) による3相骨シンチグラフィ (Fig.3) が施行された。RI アンギオグラフィ (Fig. 3 a, 3秒/フレーム) は右前腕部の軟部組織で放射能の増加を示すが、手掌部ではほとんど左右差を認めない。左右の比較には時間放射能曲線 (Fig. 3 b, c) が有用であった。プール像の早期像 (Fig. 3 d, 左) では右前腕部の軟部組織で放射能の増加を認めるものの、左手首の異常集積は軽度である。しかし3時間後の後期像 (Fig. 3 d, 右) では左手首に著明な異常集積を認めた。以上、骨シンチグラフィの所見は左手のRSDに相当した。診断名を

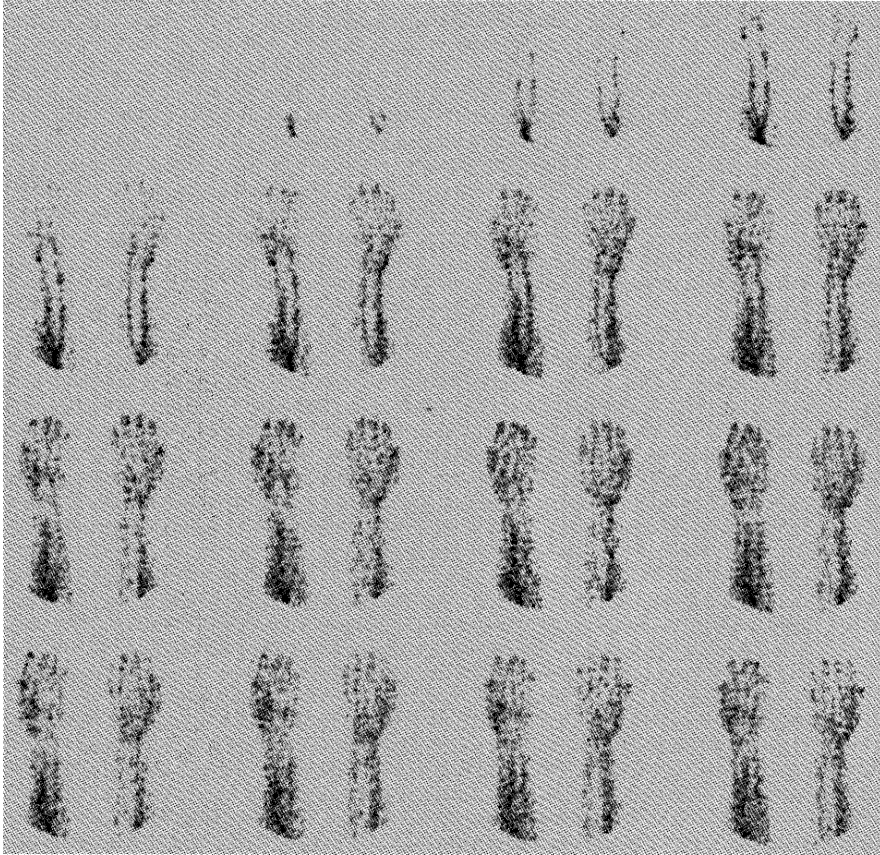


Fig. 2 X-ray graphy after three months shows bone dystrophy in the left hand, suggesting reflex sympathetic dystrophy (RSD).

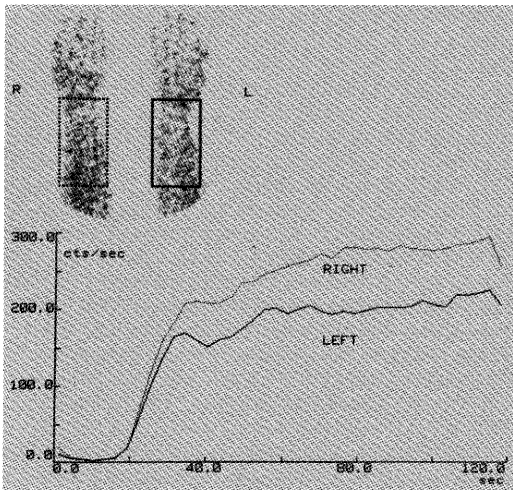
変更し、治療法も投薬にノイロトロピン4T/分2、モービック (10) 1T/分1を追加し、リハビリテーションもバイブラバス、逆行性マッサージ、タワシ運動 (3分×3回) に変更した (他に骨粗鬆症に対しビスフォスフォネートを間歇投与)。その後、8月の再診時には手の痛み・腫脹が共に軽減し、手のX線写真でも骨萎縮が改善した。9月再診時には手の痛み・腫脹が更に軽減し、手のX線写真 (Fig.4) で骨萎縮がさらに改善した。10月再診時には手のこわばり・腫脹が残存したものの、日常生活に少し障害がある程度となった。現在も治療継続中である。

考 察

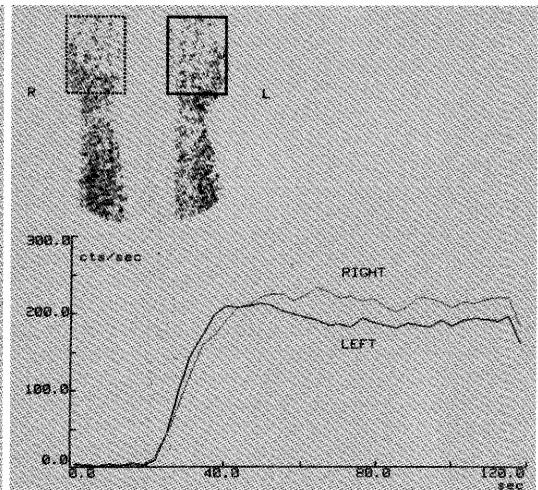
反射性交感神経性ジストロフィー (Reflex sympathetic dystrophy, RSD) は整形外科医や麻酔科医 (ペイン・クリニック) にはよく知られているが、定義、病因、治療法などについて統一見解はまだ得られていない。定義は「局所的に起こった損傷に引き続いて発症する疼痛性の病態であり、予想される通常の創傷治癒の経過を越えて続き、たびたび著明な運動機能の減退を起し、時間と共にさまざまに進行する症候群」とされている。端的に言えば、障害や外傷に不相応で長期に持続する腫れと痛みとい



a



b



c

Fig. 3 ^{99m}Tc -MDP bone scintigraphy.

(a) Radionuclide angiography (3 sec/F) shows no abnormality in the left hand, but increased uptake in the soft tissue in the right forearm.

(b) and (c), Time-activity curves on the forearm and hand, respectively.

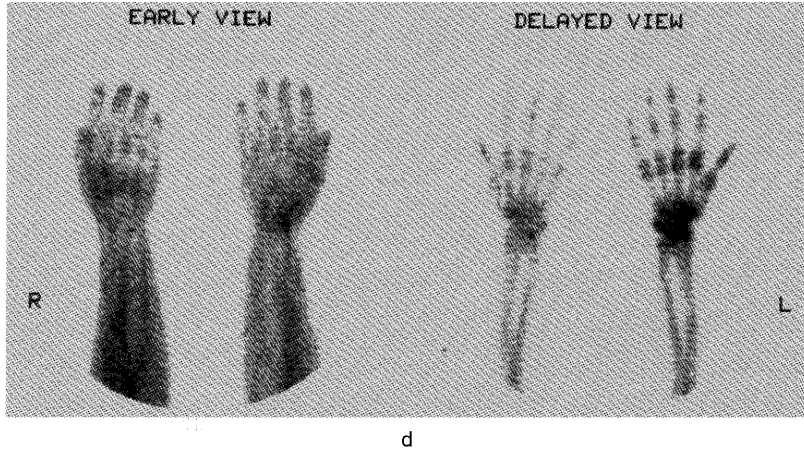


Fig. 3 ^{99m}Tc -MDP bone scintigraphy.
(d) early image (left) and delayed image (right).



Fig. 4 Follow-up X-ray graphy shows improvement of bone dystrophy.

うことであるが、医師の間でも「わけの分からない病気」であることは確かである。呼び名も、最近では RSD から Complex regional pain syndrome (CRPS) に移行しつつある。

別の文献⁹⁾によれば、RSD の概念・定義は以下のようである。「RSD とは、異常な交感神経反射を基盤とする四肢の疼痛疾患の総称であり、灼熱感で代表される疼痛、著しい腫脹、関節拘縮、皮膚の変色を 4 主徴とする疾患である。本病態発現に欠かせな

い病因の 3 要素は、持続性疼痛を生じる損傷や疾患の存在、患者自身の素因の存在および異常な交感神経反射の存在である。さらに本疾患の特徴は、素因のない人にはほとんど苦痛にならない程度の外傷や有痛性疾患が、本症患者においては耐え難い苦痛として感じられ、異常な交感神経反射を介して悪循環 (vicious cycle) を形成し、腫脹、関節拘縮、皮膚の変色、骨萎縮などが著明となり、適切な治療が行われなければ、最終的には廃用肢になってしまうことである。正常人では、身体の一部に外傷を受けると、正常な交感神経反射によって四肢の血管が収縮する。この反射は出血を止め、余分な腫脹を防ぐために必要な正常反応であり、外傷の治癒と共にこの反射は消退する。RSD の患者ではこの反射が消退せず、継続して働き続けるため、交感神経亢進状態となる。そのために末梢組織に局所的虚血が生じ、さらにそれが、より強い持続的な疼痛刺激として、異常な交感神経疼痛反射が作動することになり、悪循環が形成され RSD の発症に至ると考えられている。」

1986 年世界疼痛学会の用語委員会は、カウザルギー (causalgia) と RSD を明確に区別して定義した。それによればカウザウギーは必ず神経損傷を伴うものとし、RSD は太い神経幹の損傷がないものとしている。本疾患の特徴は、極めて軽微な外傷によっても発症し、外傷の割には症状や後遺障害の程度があまりにも強いことである。これらは、通常の医学的知識では判断しにくい側面をもっており、適

切に診断されていないことも少なくない。RSD の治療には、各種神経ブロック、薬物療法、手術（神経切除など）などが行われる。

RSD の診断に 3 相骨シンチグラフィが有効なことは、既に報告されている²⁾⁻⁸⁾。Holder ら³⁾ は RI アンギオグラフィ、血液プール像、後期像を撮像し、後期像では感度 96%、特異度 97%であったと報告している。一方、Kozin ら⁴⁾ は後期像で感度 60%、RI アンギオグラフィの感度 55%と報告している。Demangeat ら⁵⁾ は、手の RSD 患者 181 人に三相骨スキャンを行ない、発症からの経過期間別に、a) 血流速度、b) 血液プール、c) 早期 (3-5 分) の骨集積、(d) 後期 (2-3 時間) の骨集積の 4 つの指標を用いて、病期分類を行った。すなわち、病期 1 (発症から 0-20 週) では血流速度、血液プール、早期と後期の骨集積のいずれもが増加し、病期 2 (20-60 週) では、血流速度とプールは正常で、早期と後期の集積が持続した。また病期 3 (60-100 週) では、患側の手で血流速度と血液プールは減少したが、早期と後期の集積は正常であった。遅い時期の治療に比べ、早期治療では骨集積の変化はないものの、血流速度、血液プール、関節の剛性の正常化を引き起こすことを明白にした。以上より、3 相の骨スキャン所見により三つの病期を区別でき、3 相骨スキャンは RSD の病態生理と臨床展開に対して有用な情報を提供すると結論した。本症例では発症から骨シンチグラフィまで約 20 週と考えられる。RI アンギオグラフィは左手正常、早期像と後期像で異常集積を認め、Demangeat ら⁵⁾ の分類で病期 2 の所見に一致した。

最近、NIH/NINDS 神経心臓学部門長の Goldstein⁹⁾ は慢性 RSD 患者の罹患部の局所血流と交感神経活性の状況を PET で検討し、RSD の痛みは交感神経依存性疼痛ではないと結論した。すなわち一側性に疼痛を訴える慢性 RSD 患者 30 例 (平均罹病期間 5.2 年、平均年齢 40 歳) を対象に、¹³N 標識アンモニア (¹³N-A) と ¹⁸F 標識フルオロドパミン (¹⁸F-F) を用いて、それぞれ局所血流と交感神経活性を評価した。局所血流は患側で明らかに低下し、切除術施行側では未施行の健常側より高値を示した。一方、交感神経活性は意外にも患側と健常側で差を認めなかった。次に、交感神経から溢出 (spillover) したノルエピネフリン (NE) 量の検討では、症例による差が大きく RSD に有意な特徴

を認めなかった。NE の代謝産物ジヒドロキシフェニルグリコール (DHPG) の動脈における濃度差は NE 消費の指標となるが、この値もバラツキが大きく、RSD の傾向を捉えることはできなかった。切除術施行側と反対の健常側の比較では、¹⁸F-F は同等で、¹³N-A は切除術施行例で著しく高かった。切除術を施行したのに痛みが再発した症例は、切除術の効果が消失したのと考えやすいが、結果は切除術の局所血流改善効果が持続していることを示唆した。交感神経遮断薬トリメタファンを投与した 16 症例の検討では、トリメタファンが局所血流を著明に増大させ、NE の spillover を減少させるが、疼痛は軽減しなかった。以上より、RSD では 1) 局所血流は低下するが、痛みとは無関係である、2) 交感神経分布は正常らしい、3) 局所 NE はバラツキが大きいものの低下傾向を示す、ことが明白になった。従って、Goldstein は「慢性 RSD では、痛みは交感神経依存性ではないが、交感神経分布の再構築に関係する」と結論した。

RSD は外傷性のものが多いが、他に腱鞘炎からの発生による非外傷性のものがある。いずれにしても、早期診断が極めて重要である。治療は厄介であるが、本症例では患者に説明した上で行ってもらったタワシ運動が有効と考えられ、また骨シンチグラフィは RSD 診断の補助検査として有用と思われた。

文 献

- 1) 堀内行雄, 他: 反射性交感神経性ジストロフィーの病因と病態. *MB Orthop* 8: 9-17, 1995
- 2) Sahin M, Bernay I, Canturk F, Demircali AE.: Reflex sympathetic dystrophy syndrome secondary to organophosphate intoxication induced neuropathy. *Ann Nucl Med* 8: 299-300, 1994
- 3) Holder LE, Mackinnon SE.: Reflex sympathetic dystrophy in the hands: clinical and scintigraphic criteria. *Radiology* 152: 517-522, 1984
- 4) Kozin F, Soin JS, Ryan LM, Carrera G, Wortmann RL: Bone scintigraphy in reflex sympathetic dystrophy syndrome. *Radiology* 138: 437-443, 1981
- 5) Demangeat JL, Constantinesco A, Brunot B, Foucher G, Farcot JM.: Three-phase bone scanning in reflex sympathetic dystrophy of the hand. *J Nucl Med* 29: 26-32, 1988
- 6) Holder LE, Cole LA, Myerson MS.: Reflex sympathetic dystrophy in the foot: clinical and scintigraphic criteria. *Radiology* 184: 531-535, 1992

- 7) Mackinnon SE, Holder LE.: The use of three-phase radionuclide bone scanning in the diagnosis of reflex sympathetic dystrophy. *J Hand Surg* **9A**: 556-563, 1984
 - 8) Greyson ND, Tepperman PS.: Three-phase bone scans in hemiplegia with reflex sympathetic dystrophy and the effect of disuse. *J Nucl Med* **25**: 423-429, 1984
 - 9) Goldstein DS. 特別講演「反射性交感神経性ジストロフィーの慢性疼痛は交感神経によらない」. *Medical Tribune* 2001年7月19日号, p37
-