

## 《症例報告》

## 痙攣重積に伴う低酸素脳症の2幼児例

水野 晋二\*      後藤 裕夫\*      星 博昭\*      山田 直人\*\*  
 加藤善一郎\*\*      高橋 幸利\*\*      下澤 伸行\*\*      近藤 直実\*\*

**要旨** 症例は2例とも2歳の女児で、主訴はいずれも痙攣重積による昏睡であった。画像所見は2例ともほぼ共通し、亜急性期のCTでは大脳皮質に広汎なdensityの低下が認められたが、一次運動・感覚野、後頭葉はdensityの低下が認められなかった。慢性期のMRI、CTでは萎縮が認められるのみであったが脳血流SPECTでは、一次運動・感覚野、後頭葉の血流はほぼ正常で、他の領域の血流低下がみられ、他検査では得られない情報であった。また同部位は新生児の低酸素性虚血性脳症において一般に障害されやすい部位であるが、2歳幼児である本症例においては、一次運動・感覚野、後頭葉以外の大脳皮質が障害されており、障害部位のパターンが新生児とは異なっていた。

(核医学 35: 141-146, 1998)

## I. はじめに

低酸素脳症は種々の原因で脳血流が障害され、重症例では昏睡になり死亡することもある病態である。低酸素脳症に対する脳血流SPECT所見は今までにいくつかの報告があり興味ある所見を呈すると言われている。われわれは低酸素脳症をきたした2例の幼児に対して、脳血流SPECTを施行し、興味ある所見を得たので文献の考察を加えて報告する。

## II. 症 例

## (1) 症例 1

2歳、女児

主訴：昏睡

既往歴：特記すべきことなし

家族歴：兄に喘息

\* 岐阜大学医学部放射線科

\*\* 同 小児科

受付：9年12月10日

最終稿受付：10年1月22日

別刷請求先：岐阜市司町40 (☎ 500-8705)

岐阜大学医学部放射線科

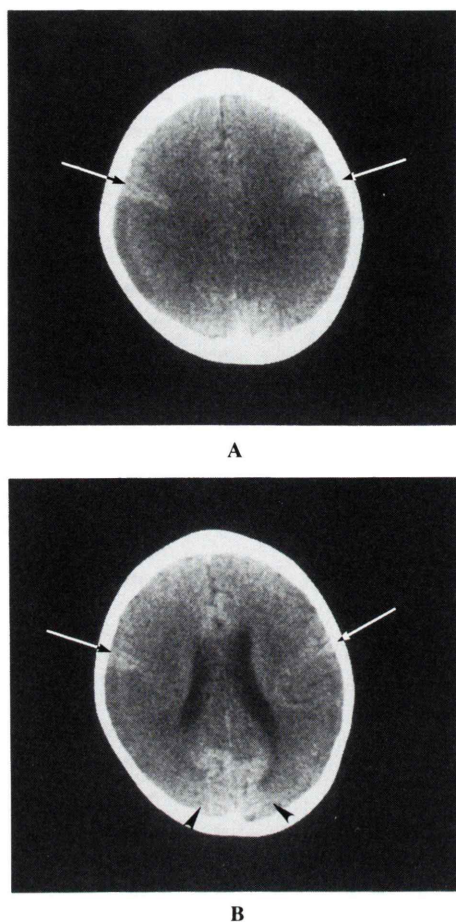
水 野 晋 二

出生歴：特記すべきことなし

現病歴：微熱、咳嗽あり、近医にてtheophylline坐薬を処方され挿肛した。数時間後痙攣発作があり近医を再受診した。痙攣重積となったため、当院へ緊急入院となった。髄液検査で、theophylline濃度が中毒域であったため、theophyllineによる痙攣発作と診断された。入院後加療により痙攣発作は徐々に消失したが意識障害を認めた。脳波では入院時に徐波と紡錘波を認め、その後全体に低電位となった。

頭部CT、MRI所見：第1病日のCT、第3病日のMRI (Signa 1.5 T: GE社製)では異常所見を認めなかった。第14病日のCTでは中心溝近傍の一次運動感覚皮質と後頭葉を除いて大脳皮質のdensityが全体に低下し、広汎な脳障害が疑われた (Fig. 1 A, B)。また視床、基底核のdensityも保たれていた。第41病日のCTでは全脳が著明な萎縮を示していた。

脳血流SPECT所見：脳血流SPECTは患児を安静閉眼状態とし<sup>99m</sup>Tc-ECD 200 MBqを静注後5分において撮影を開始した。SPECTはPRISM3000 (Picker社製)を用い72 step (1 step 60 sec), 128×128 matrixで360度収集し、Changの吸収補正を



**Fig. 1** Case 1. CT images (on 14 days) showing normal density of the primary sensorimotor cortex (arrows) remained wedge-shaped, and the occipital lobe (arrowheads).

行った。第 65 病日に行われた  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD SPECT (Fig. 2 A, B) では、一次運動感覚皮質、後頭葉皮質、視床、基底核、小脳の血流は比較的良好であり、第 14 病日の CT で正常と思われた領域と一致していた。同日に施行した MRI においては脳萎縮を認めるのみで、部位による皮質の intensity の差は認めなかった (Fig. 3)。第 93 病日に施行した脳血流 SPECT でも第 65 病日と同様の所見であった。同日の MRI も第 65 病日と同様であり、部位による皮質の intensity の差はみられなかった。脳血流 SPECT 施行時には意識障害はかなり

改善していた。

## (2) 症例 2

2 歳、女兒

主訴：昏睡

既往歴：特記すべきことなし

家族歴：特記すべきことなし

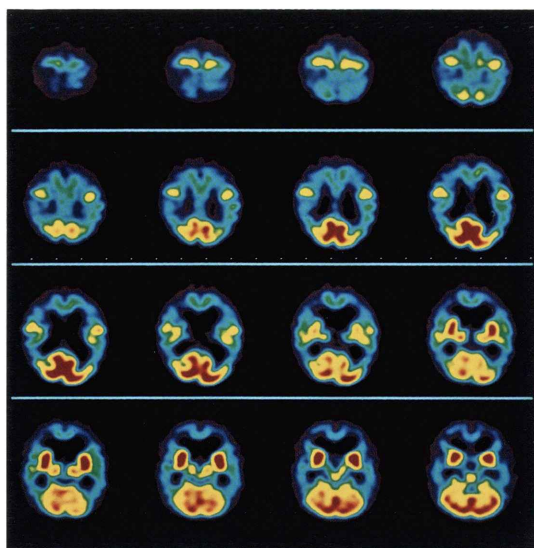
出生歴：特記すべきことなし

現病歴：数日前より父と姉がインフルエンザに罹患していた。本人と母が発熱し近医を受診、解熱剤の投薬を受けた。同日夕方より全身の強直間代痙攣がみられ痙攣重積となり、昏睡となったため当院へ入院となる。髄液検査で、インフルエンザウイルス抗体が高値であったため、インフルエンザウイルス脳炎による痙攣発作と診断された。入院後、ミオクローヌスを伴った痙攣発作と意識障害を認めた。脳波上、入院時に周期性の高振幅徐波が認められたが、経過とともに減少していった。

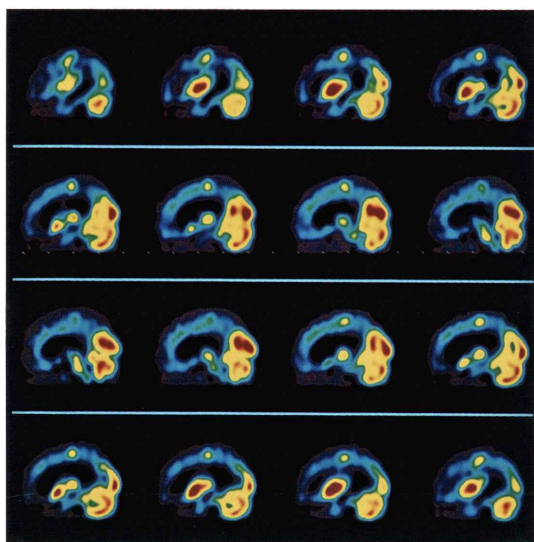
頭部 CT, MRI 所見：第 2 病日の MRI, 第 4 病日の CT では異常所見を認めなかった。第 14 病日の CT (Fig. 4 A, B) では一次運動感覚皮質と右後頭葉皮質を除いて大脳皮質の density が低下し、広汎な脳障害が疑われた。第 21 病日の CT でも同様な所見を呈し、第 28 病日の MRI では T2WI で大脳皮質の intensity が全体に上昇しており、中心溝近傍の一次運動感覚皮質では intensity の上昇は認められなかった。第 57 病日の MRI (Fig. 5) では、側脳室後角周囲の深部白質の intensity には左右差があるものの大脳皮質には intensity の差は認められなかった。

脳血流 SPECT 所見：脳血流 SPECT は症例 1 と同様の撮影方法で撮影を行った。第 59 病日に  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD SPECT (Fig. 6 A, B) を施行した。SPECT 施行時には痙攣発作、意識障害とも改善していた。中心溝近傍の一次運動感覚皮質、右後頭葉皮質、基底核、視床、小脳の血流は比較的良好で、第 14 病日の CT で density が正常と思われた領域と一致していた。



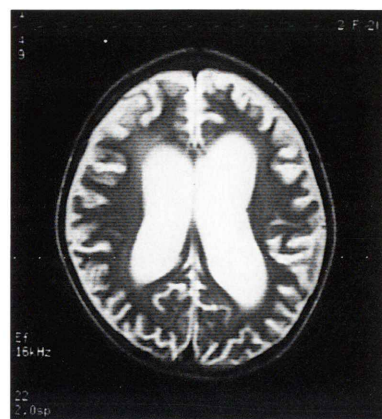


A

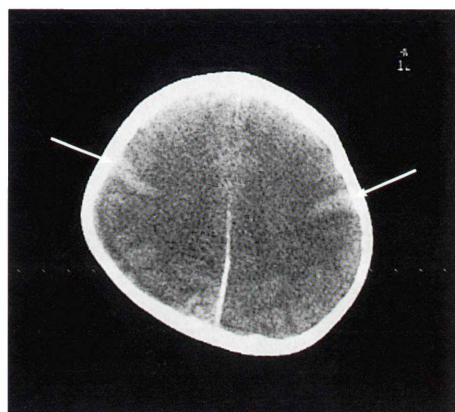


B

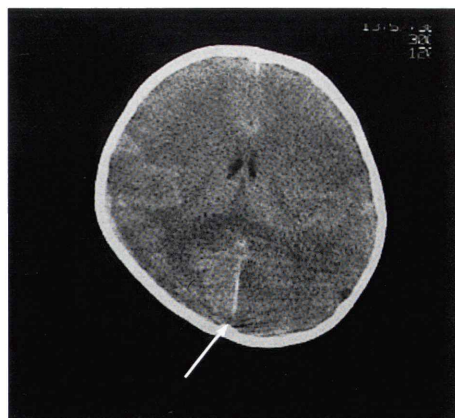
**Fig. 2** Case 1.  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD SPECT (on 65 days). Axial image (A) and sagittal image (B) showing low perfusion in the whole brain except for the primary sensorimotor cortex, the occipital lobe, thalamus, basal ganglia and cerebellum.



**Fig. 3** Case 1. T<sub>2</sub>-weighted MR image, FSE, TR: 3500, TE: 98 (on 65 days), showing generalized atrophy with no abnormal intensity area.



4A



4B

**Fig. 4** Case 2. CT images (on 14 days) showing normal density in the primary sensorimotor cortex (arrows) remained wedge-shaped, and the left occipital lobe (arrowheads).

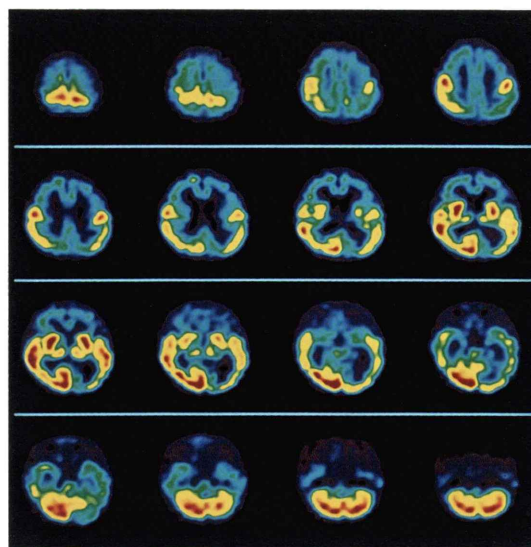


Fig. 5 Case 2. T<sub>2</sub>-weighted MR image, FSE, TR: 3500, TE: 98 (on 57 days), showing generalized atrophy with no abnormal intensity area of the cortex.

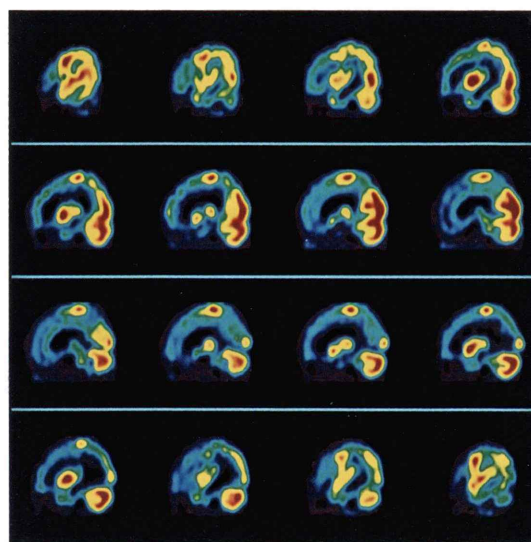
### III. 考 察

気管支拡張剤である theophylline によるけいれんの誘発は以前より知られているが、最近では theophylline の血中濃度が治療域程度の低濃度でもけいれん発作をきたした症例の報告がみられるようになった<sup>1)</sup>。Theophylline 関連けいれん<sup>2,3)</sup>による脳症の脳血流 SPECT 所見の報告はなく、theophylline 関連けいれんによる脳症で障害されやすい部位が存在するかどうかは、わからないが、病因の異なる症例 2 においても同様の所見が認められており、共通する痙攣重積による低酸素脳症に起因する所見と考えられる。しかしながら、今回の 2 症例の脳血流 SPECT で血流が良好であった部位は一般には低酸素脳症において障害を受けやすいとされている部位であり<sup>4,5)</sup>、矛盾する結果を生じている。

小児期における低酸素脳症は出産に伴って起きることが多く、低酸素性虚血性脳症 (Hypoxic Ischemic Encephalopathy) と呼ばれ、報告例も新生時期であることが多い。MRI, PET による検討ではこの時期の低酸素脳症で障害されやすい部位は、中心溝近傍の一次運動感覚皮質、後頭葉、視床、基底核、脳幹、小脳虫部などである。Biago ら<sup>6)</sup>は、髄鞘形成期の皮質は髄鞘化のため



A



B

Fig. 6 Case 2. <sup>99m</sup>Tc-ECD SPECT (on 59 days). Axial image (A) and sagittal image (B) showing low perfusion in the whole brain except for the primary sensorimotor cortex, the left occipital lobe, thalamus, basal ganglia and cerebellum.

代謝が亢進しており、虚血に弱いとしており、部位により障害に差がみられるのは髄鞘化の相違によるものと推論している。しかし、Barkobitch



ら<sup>7,8)</sup>は、新生児以降の子供の低酸素脳症による脳障害のパターンは、新生児のそれと異なり、広範な皮質障害が存在するにもかかわらず中心溝近傍(periolandic regions)が障害を受けにくいと報告している。1歳前後には、一次運動感覚皮質、一次視覚皮質(後頭葉)に属する神経線維の髄鞘化が完成するとされているが<sup>9)</sup>、その後低酸素脳症に対する脆弱性は消失し、逆に低酸素に対し抵抗性になる可能性があると考えられた。

今回われわれが経験した症例は2例とも幼児期であり、新生児期でなかったことがこれまでの報告と異なった所見を呈した原因と考えられる。また、2例ともほぼ同様の部位が障害を免れていたが、症例2では左後頭葉は障害されており個体差もあるものと考えられた。さらに基底核は、低酸素による障害を受けやすいとされているが、われわれの症例では、2例とも障害されていなかった。

また、一次運動感覚皮質、一次視覚皮質はアルツハイマー病で最後まで血流が良好である部位であり、脳血流 SPECT で今回の2症例と同様の所見を呈するのは興味深い<sup>10)</sup>。

今回の2症例とも広汎な脳障害にもかかわらず、運動感覚野、視覚野が保たれていることが脳血流 SPECT から示唆された。臨床的にも2症例は四肢をよく動かし、痛み刺激に対する反応も認められ、また追視行動をよく行っていた。形態学的な画像である MRI、CT では描出されない血流の違いを脳血流 SPECT は描出しているものと考えられる。したがって予後、リハビリテーションの適応を決める上でも脳血流 SPECT は有用と思われた。

#### IV. ま と め

脳血流 SPECT で興味ある所見を示した幼児低

酸素脳症の2例を報告した。幼児の低酸素脳症では新生児で一般に障害されやすいとされる一次運動感覚皮質、一次視覚野が逆に障害を免れていた。

#### 文 献

- 1) 前垣義弘, 小枝達也, 河原仁志, 竹下研三: Theophylline による喘息治療中に発症した急性脳症の2小児例——臨床の特徴ならびに CT 経過——. 脳と発達 **25**: 277-282, 1993
- 2) Dunn DW, Parekh HU: Theophylline and Status Epilepticus in Children. *Neuropediatrics* **22**: 24-26, 1991
- 3) Fredrick HB, Kelvin KM, Thomas DB: Theophylline-associated seizures with "therapeutic" or low toxic serum concentrations: Risk factors for serious outcome in adults. *Neurology* **41**: 1309-1312, 1991
- 4) Cowan FM, Pennock JM, Hanrahan JD, Manji KP, Edwards AD: Early Detection of Cerebral Infarction and Hypoxic Ischemic Encephalopathy in Neonates Using Diffusion-Weighted Magnetic Resonance Imaging. *Neuropediatrics* **25**: 172-175, 1994
- 5) Rutherford MA, Pennock JM, Schwieso JE, Cowan FM, Dubowitz LMS: Hypoxic Ischemic Encephalopathy: Early Magnetic Resonance Imaging Findings and Their Evolution. *Neuropediatrics* **26**: 183-191, 1995
- 6) Biagio A, Karen SC, John PP, William ED: Hypoxic-Ischemic Encephalopathy in Areas of Primary Myelination: A Neuroimaging and PET Study. *Pediatr Neurol* **14**: 108-116, 1996
- 7) Barkovich AJ, Truwit CL: Brain Damage from Perinatal Asphyxia: Correlation of MR Findings with Gestational Age. *AJNR* **11**: 1087-1096, 1990
- 8) Barkovich AJ: MR and CT evaluation of profound neonatal and infantile asphyxia. *AJNR* **13**: 959-972, 1992
- 9) Betty AB, Hannah CK, Alexander SKAB, Floyd HG: Sequence of Central Nervous System Myelination in Human Infancy: An Autopsy Study of Myelination. *J Neuropathol Exp Neurol* **46**: 283-301, 1987
- 10) Matsuda H: An Atlas of Second-Generation SPECT, Brain. In: Housed K (ed.), MARUZEN Planning Network Co. Ltd., Tokyo, 1991, pp. 21-94

## Summary

### Two Cases of Two-year-old Girls with Hypoxic Ischemic Encephalopathy Induced by Convulsive Status

Shinji MIZUNO\*, Hiroo GOTO\*, Hiroaki HOSHI\*, Naoto YAMADA\*\*,  
Zenichiro KATO\*\*, Yukitoshi TAKAHASHI\*\*,  
Nobuyuki SHIMOZAWA\*\* and Naomi KONDO\*\*

*\*Department of Radiology, Gifu University School of Medicine*

*\*\*Department of Pediatrics, Gifu University School of Medicine*

We reported two cases of two-year-old girls with hypoxic ischemic encephalopathy. Their symptom was coma induced by seizures with respective factors. CT image on subacute stage showed the decreased density of the whole brain except for the primary sensorimotor cortex and the occipital lobe. MRI and CT images on chronic stage revealed generalized atrophy with no abnormal density areas. <sup>99m</sup>Tc-ECD SPECT on chronic stage showed low perfusion in the whole brain except for the primary sensorimotor cor-

tex and the occipital lobe, in which areas brain tissue is considered to be injured easily in hypoxic ischemic encephalopathy. The paradoxical distribution of abnormal cerebral perfusion areas in our cases was reported in this paper.

**Key words:** Hypoxic ischemic encephalopathy, Single photon emission computed tomography, Technetium-99m ethyl cysteinate dimer, Infant, Primary sensorimotor cortex.