

（様式6-A） A. 雑誌発表論文による学位申請の場合

柴田 真 氏から学位申請のため提出された論文の審査要旨

題 目 Neurogenic calf amyotrophy with CK elevation by entrapment radiculopathy;  
Clinical, radiological, and pathological analyses of 18 cases  
（絞扼性腰神経根症による高CK血症を伴う神経原性下腿筋萎縮症；  
18例の臨床的、放射線学的、病理学的検討）  
Journal of Neurology 267(12): 3528-3540, 2020  
Makoto Shibata, Hiroo Kasahara, Kouki Makioka, Masaki Ikeda,  
Kazuaki Nagashima, Yukio Fujita, Yoshio Ikeda

論文の要旨及び判定理由

腰椎症性神経根症は、椎間板膨隆や椎骨変形などにより脊柱管や椎間孔が狭窄することで腰神経根を圧迫して神経症状が生じている状態を指す。本研究では、腰椎症性神経根症に伴う高CK血症を伴った下腿筋萎縮を来した患者を後方視的に検討した。2004年1月1日から2019年10月15日までに当科に受診歴のある患者で、(1) 血清CKの高値が2回以上連続して1ヶ月以上の間隔をあけて確認されている、(2) 片側ないし両側性に骨格筋CTや骨格筋MRIで腓腹筋変性が確認されている、(3) 腰椎MRIでL5ないしS1神経根の圧迫を認める症例を対象とした。診療記録を用いて神経学的所見、血液検査所見、電気生理学的所見、画像所見などを抽出した。加えて、4例の腓腹筋からの筋生検標本を病理学的に評価した。これらの所見から、共通した臨床像を呈する疾患群をneurogenic calf amyotrophy with CK elevation by entrapment radiculopathy (NCACKKEER)と命名し、新たな診断基準を作成した。診断カテゴリーのpossible以上に該当するNCACKKEERは18例認められた。平均発症年齢は65.6歳で、72%の症例は男性であった。平均body mass indexは25.1kg/m<sup>2</sup>と高値であった。筋力低下や筋萎縮は主に腓腹筋を中心とした下腿に局限しており、アキレス腱反射は全ての症例で消失していた。下腿の筋腫脹は17%、感覚障害は44%の症例に認められた。血清CK上昇の程度は237～2294IU/Lの幅があった。針筋電図検査を評価された15例全てにおいて、罹患筋に神経原性変化が認められた。腰椎MRIでは矢状断画像で脊柱管狭窄所見、または水平断画像でL4/5間とL5/S1間で椎間孔狭窄所見が認められた。加えて腰椎MRI矢状断画像の解析では、疾患対照群と比較して腰椎と仙椎のアライメントは有意に直線化していた。全ての採取された筋生検標本では炎症細胞浸潤を伴わない神経原性筋変性の所見を示した。血清CKがより高値の症例では病理学的に腓腹筋の筋線維壊死所見が高度であった。

腰椎症性神経根症に伴う下肢の運動感覚障害はしばしば認められるが、血清CK上昇を伴うことは稀であり、本研究のように多数例を解析した論文はない。腓腹筋は主にS1>L5神経根で支配され全体重を支える強力な骨格筋であり、起立や歩行による負荷がかかりやすいことが想定される。腰神経根症に伴い下腿筋変性が生じた際には残存した筋線維への負荷が増大する。運動負荷への代償として筋線維の肥大が起こるが、この代償機構が破綻すると筋の壊死が生じ、その結果高CK血症を生じることがNCACKKEERの病態機序として想定された。NCACKKEER診断のスクリーニングには血清CK、骨格筋CTが有用であり、確定診断には腰椎MRI、針筋電図、腓腹筋からの筋生検が有用であると考えられた。本研究の成果は、NCACKKEERの病態、疾患概念を新たに確立するものと認められ、博士（医学）の学位に値するものと判定した。

（令和2年12月2日）

審査委員

主査	群馬大学教授（医学系研究科） リハビリテーション医学分野担任	和田 直樹	印
副査	群馬大学教授（医学系研究科） 神経精神医学分野担任	福田 正人	印
副査	群馬大学教授（医学系研究科） 生体構造学分野担任	松崎 利行	印

参考論文 なし

（様式6， 2頁目）

最終試験の結果の要旨

下腿筋萎縮症の鑑別診断についておよびNCACKKEERにおいて血清CKの上昇するメカニズムについて試問し満足すべき解答を得た。

（試験年月日 令和2年12月2日）

試験委員

群馬大学教授（医学系研究科）  
脳神経内科学分野担任

池田 佳生 印

群馬大学教授（医学系研究科）  
神経精神医学分野担任

福田 正人 印

試験科目

主専攻分野 脳神経内科学 A

副専攻分野 神経精神医学 A