

## 糖尿病性舞踏病の1例

### —Magnetic resonance imaging(MRI)からみた病因についての考察—

葛籠 幸栄\*<sup>1</sup> 中山 修一\*<sup>1</sup> 山崎 正博\*<sup>2</sup> 浜重 直久\*<sup>3</sup> 公文 義雄\*<sup>4</sup>

要約：症例は81歳の女性。2006年9月3日より突然右上下肢のくねるような動きが出現。症状は数日経過後も続くため当院受診入院した。初診時、右上下肢に特徴的な不随意運動を認め舞踏病と診断。随時血糖値は422 mg/dl、HbA<sub>1c</sub> 13.4%と糖尿病を認めた。インスリン治療を開始し、数日後には不随意運動は消失し糖尿病性舞踏病と診断した。以後、症状の再燃はない。頭部CT画像では左被殻にスリット状の高信号域を認めるも脳出血とは異なりMRI T1強調画像で同部位の高信号域とT2\*強調画像では低信号域を認めた。MR Angiography(MRA)では同部位へ周辺血管からの染み出し様の辺縁不整な軽度の高信号域を認めた。この染み出し様の異常影は4カ月後には消失していた。糖尿病性舞踏病症例でのMRA所見の報告はなく、診断や病態の解明に有用と考え報告する。

Key words：①不随意運動 ②糖尿病性舞踏病 ③MRI ④高血糖  
〔糖尿病51(11)：1001～1006, 2008〕

#### はじめに

不随意運動の責任病巣として線条体が重要視され、糖尿病性舞踏病の原因が報告<sup>1-7)</sup>されている。最近、MRI T2\*強調画像による検討<sup>7-9, 11)</sup>や、剖検、生検例の検討などにより、その原因は出血、梗塞、石灰化、gliosisなどが示唆されているものの、通常の梗塞や出血とは異なる画像所見を呈しているため詳細はいまだ明らかになっていない。今回、われわれはコントロール不良の糖尿病患者で舞踏病を呈した症例を経験した。舞踏病は治療開始数日後に血糖の改善とともに速やかに消失したが、その後画像所見の異常は数カ月の間続いており、糖尿病性舞踏病の発症機序の解明に興味深い症例と考え報告する。

#### 症例

患者：80歳、女性。無職、右利き。

主訴：右上下肢の不随意運動。

既往歴、家族歴：特記事項なし。

現病歴：生来健康であった。

2006年9月3日突然右上下肢のくねるような動きが出現し、書字が困難になった。症状は続き9月7日に近医を受診、頭部MRI検査を受けるも異常を指摘されなかった。9月11日、症状が増悪したため当院外来を受診、精査加療のために同日入院となる。

入院時現症：153 cm, 51 kg, 血圧 164/90 mmHg, 脈拍 74/分, 整, 体温 36.8 度。眼球結膜に貧血, 黄疸なく, 胸腹部に異常を認めなかった。大腿動脈, 足背動脈は両側触知可能で, 神経学的所見では, 右上下肢にねじるような, あるいは投げ出すような比較的急な運動が間歇的に認められ, 舞踏病もしくはバリズムと考えられた。精神的緊張により悪化し睡眠中以外は持続していた。筋トーンは正常で脳神経症状, 錐体路症状, 運動失調, 感覚障害は認めず, 深部腱反射亢進なく, 病的反射も認めなかった。また, 表在知覚の異

\*<sup>1</sup> 近森病院糖尿病内分泌代謝内科(〒780-8522 高知県高知市大川筋1丁目1-16)

\*<sup>2</sup> 近森病院神経内科

\*<sup>3</sup> 近森病院内科

\*<sup>4</sup> 高知大学医学部病態情報診断学

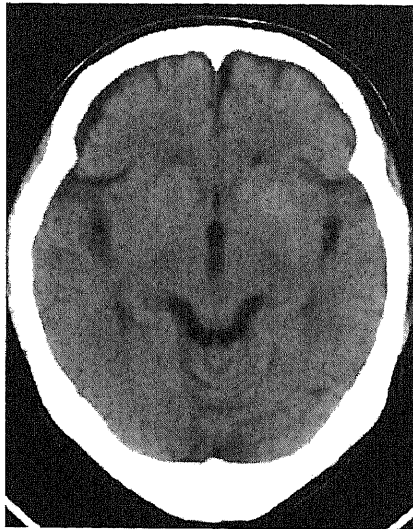
連絡先：葛籠幸栄(〒780-8522 高知県高知市大川筋1丁目1-16 近森病院糖尿病内分泌代謝内科)

受付日：2008年3月24日

採択日：2008年8月3日

**Table 1** Laboratory data on admission

Urinalysis		Blood Chemistry					
Sugar	(4+)	TP	7.7 g/dl	Ca	89 mg/dl	Insulin	2.9 mIU/ml
Protein	(-)	Alb	4.4 g/dl	GOT	23 IU/l	U-Alb	11.0 IU/l
Ketone	(±)	BUN	17.4 mg/dl	GPT	28 IU/l	24 HrCcr	131 ml/min
CBC		Crn	0.4 mg/dl	T-Chol	231 mg/dl	Chest XP	CTR 46%
WBC	5,200 $\mu$ l	UA	3.1 mg/dl	TG	66 mg/dl	ECG	W. N. L
RBC	$493 \times 10^4$ $\mu$ l	Na	139 mEq/l	HDL-C	6.2 mg/dl		
Hb	13.9 g/dl	K	3.9 mEq/l	CRP	0.1 mg/dl		
PLT	$17.3 \times 10^4$ $\mu$ l	Cl	106 mEq/l	Glucose	422 mg/dl		



**Fig. 1** Cranial CT  
Note the slight high-density area in the left putamen.

常も認めなかった。

入院時検査所見 (Table 1) : 血糖値 422 mg/dl, HbA1c 13.4% と高値, 尿糖 (4+), 尿蛋白 (-), 尿ケトン体 (-) であった。末梢血液像には異常はなかった。糖尿病網膜症の眼底所見はなく, アルブミン尿陰性で尿中 CPR は正常範囲内であった。また, 糖尿病神経症, 腎症の合併は認めなかった。

入院時経過: 糖尿病性舞踏病を疑い, インスリン 30 Mix 朝 8 単位, 夕 8 単位皮下注射,  $\alpha$ -GI 0.9 mg/day に加えてハロペリドール 0.75 mg/day の投与を開始した。血糖の改善とともに不随意運動は翌日には消失し始め, 第 3 病日には随意運動時に少し不随意運動を認めるのみとなり, 第 5 病日には書字も可能となった。本例の特徴である①突然発症した右上下肢の遠位部優位の不随意運動, ②睡眠中は不随意運動を認めないこと, ③患側上下肢の筋トーンスは低下していないこと, ④高血糖の治療に伴い消失したこと等より最終的に糖尿病性舞踏病と診断した。

画像所見の特徴: 発症初期の CT 画像で, 左被殻に

スリット状の高吸収域を認めたが, density の違いや mass effect がないことより典型的な脳出血とは異なるものであった (Fig. 1)。また, MRI 画像では発症初期の脳血管障害検索に優れている拡散強調画像法 (DWI) では異常を認めなかった (Fig. 2)。T1 強調画像では, 左被殻に高吸収域を, T2 強調画像では異常を認めず, T2\* 強調画像で左被殻の外側に低信号域を認めた。さらに, MRA では責任病巣部の血管周囲に染み出し様の高信号域を認めた (Fig. 3)。4 カ月後に施行した MRI 画像では, 以前の T1 強調画像の高信号域は淡明化し, T2\* 強調画像の低信号域は被殻の前後に拡大していた。また, MRA での異常所見は消失していた (Fig. 4)。

### 考察

糖代謝異常に伴う舞踏病に関する報告は 1960 年 Bedwell ら<sup>1)</sup>や Schwarz ら<sup>2)</sup>が最初に報告し, 1982 年に Rector ら<sup>3)</sup>は非ケトン性高血糖に伴った不随意運動の 3 症例を報告し, 高浸透圧により神経伝達物質のバランスが崩れることが舞踏病の発症機序と推察している。その後, 画像診断が進歩し, 高血糖に伴う舞踏病やバリエーション例では頭部 MRI にて線条体に T1 強調画像で高信号域, T2 強調画像で低信号域といった特徴的な画像所見を示す報告<sup>10)</sup>が見られるようになり, 線条体や基底核の血管障害や脱髄の可能性が論じられた<sup>4,6,7)</sup>。しかし, 異常所見は必ずしも一致しておらず, 病因の詳細はいまだ不明である。

また, 近年開発された T2\* 強調画像の特徴は出血性病変に対する検出能が極めて高く, 特に無症候性の微小出血 (microbleeds) の検出力が, 他の MRI 画像に比べて各段に優れている。T2\* 強調画像は, 脳血管障害の再発予防のために抗血小板剤や抗凝固剤が用いられる昨今において出血性合併症がより大きな問題になりつつあり, 投与前に画像にて microbleeds の有無を確認し脳血管の評価をするために開発された。T2\* 強調画像はパルス系列として GE 法を用いて撮影され, コントラストは組織の性状を表す固有の時定数である

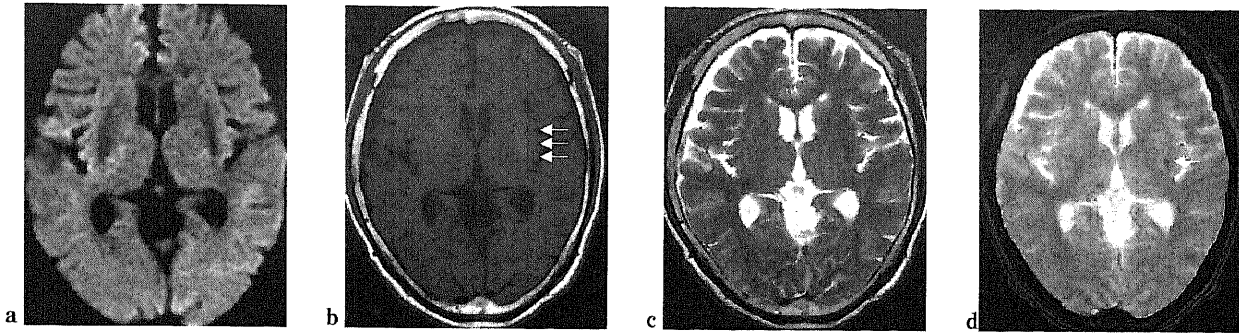


Fig. 2 Cranial MRI

a) Diffusion-weighted imaging ; b) T1-weighted MRI ; c) T2-weighted MRI ; d) T2\*-weighted MRI

Cranial MRI showing a high-intensity area (arrows) in T1-weighted MRI and a low-intensity area (arrow) in T2\*-gradient-echo MRI in the left putamen.

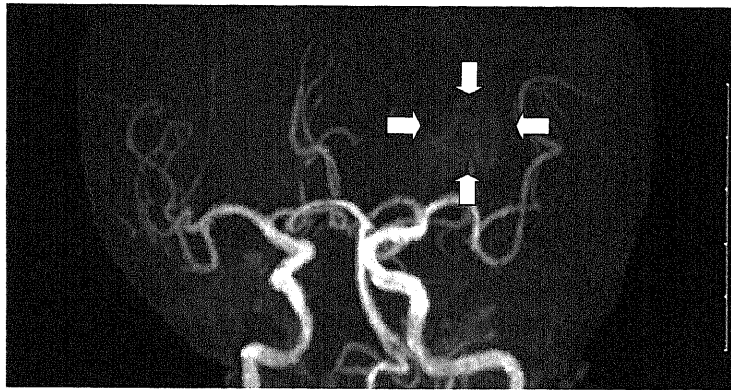


Fig. 3 Cranial MRA

MRA showing an oozing-like intensity area with an irregular margin (surrounded by arrows) in the left putamen.

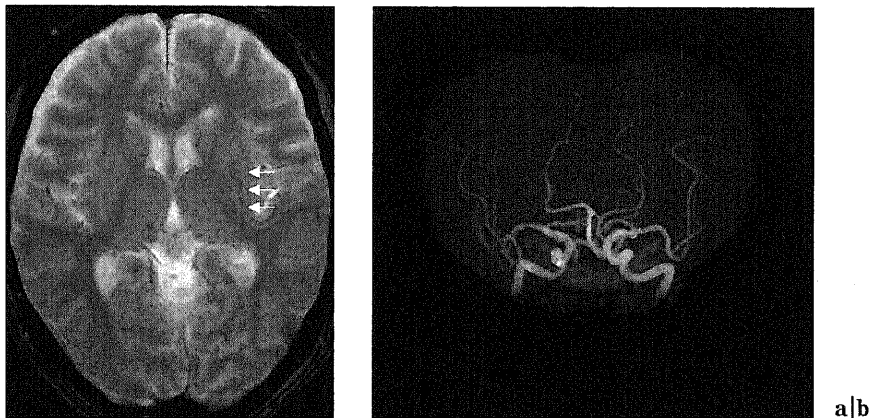


Fig. 4 a) T2\*-weighted MRI, b) MRA four months later

a) The low-intensity area (arrows) in the left putamen in T2\*-weighted MRI appeared to be spreading.

b) The oozing-like intensity area in the left putamen on MRA disappeared four months later.

T2に関する情報に加えて局所の磁場の不均一性に依存する時定数  $T2^*$ に関する情報を含んでいる。そのため組織内に局所の静磁場の不均一を引き起こす常磁性体物質(例えば出血)が存在すると、その部位で磁場

の不均一のためにMR信号の横磁化成分の減衰が早くなる。局所の磁化率の差に鋭敏な撮影法であり、susceptibility-weighted image (SWI)とも呼ばれる。その結果、磁場の不均一性を有する部分は信号が抜け

Table 2 MRI findings on cases of diabetic chorea

症例	患側	入院時 MRI 所見			Follow Up MRI 所見			備考	
		発症後期間(日)	T1	T2	T2*	発症後期間(日)	T2		T2*
66 男	右	6	H	H	n. p	60	L	L	Lai P
78 男	両	7	H	n. p	n. p	180	(-)	(-)	
67 男	右	7	H	n. p	n. p	180	(-)	L	
77 男	右	4	H	n. p	n. p	(-)	(-)	(-)	Chu K
65 男	右	5	H	n. p	n. p	(-)	(-)	(-)	
69 女	左	4	H	H	n. p	(-)	(-)	(-)	
62 女	左	22	H	L	n. p	(-)	(-)	(-)	周藤 石橋
76 女	左	11	H	L	L	(-)	(-)	L	
75 女	左	5	H	L	L	(-)	(-)	(-)	
自験例	右	9	H	n. p	L	120	n. p	L	

L; Low-density area, H: high-density area, N: no findings, (-): not examined

て無信号域ないし低信号域となる。細胞外液中にヘモシデリンなどを多数含んだマクロファージなどがあることより、脳組織内で T2\* 強調画像で低信号にみえるものはほとんどが出血か鉄沈着、あるいは石灰化であると一般的には考えられている。Fazekas らの報告によると、脳出血の剖検例に T2\* 強調画像で撮影したところいくつか microbleeds が認められたが、組織学的検討においては microbleeds の見られた病巣の血管には fibrohyalinosi s あるいは amyloid angiopathy が確認されており、脆弱性、易出血性を呈するに至った microangiopathy に関連していると結論されている。この点を考慮すると、糖尿病性舞踏病では血糖コントロール不良状態が線条体の虚血病変部に微小出血を生じるメカニズムも推測されるが、実際の報告例では T2\* 強調画像において異常像を認めるもの<sup>7,9,11)</sup>と認めないもの<sup>9)</sup>とがある。自験例を含め T2\* 強調画像の記載がある糖尿病性舞踏病症例の特徴を Table 2 にまとめた。

本症例もあわせた 10 例では T2\* 強調画像で、発症して間もない時期には異常を示さない症例を 7 例認め、経時的に 4 症例が線条体にやや低信号域を認めた。また、初期から異常所見を認める症例は 3 例しかなく、本症例を含めた 2 例においてはその低信号域は拡大傾向を示した。

画像所見と臨床所見の解離を認める症例があり、T2\* 強調画像の異常像出現の病態やメカニズムは不明であることより本症の T2\* 強調画像の低信号域は必ずしも微小出血とは限らず、何らかの代謝異常を示している可能性も考えられる。また、T2\* 強調画像の異常所見は糖尿病性舞踏病の全例で認められるのではなく、さらに舞踏病の改善と並行して消失していないことより、症状に直結した本質的な病態を示しているのではない可能性がある。

本症の予後は、死亡の転帰をとる不良なものもある。病理解剖で基底核の梗塞を証明しているものもあるが、予後良好なものの中には生検で gliosis を証明したものもある<sup>2)</sup>。このような症例での MRI 画像の異常所見と病理所見の対比が解決への糸口になりうると考える。

今回、われわれは MRI 画像所見に特徴的な異常所見を呈した症例を経験した。本所見は糖尿病性舞踏病に比較的特異的な所見であり診断に有用と考えられた。しかし、本疾患の発症の原因は不明で、なぜ病変が 1 側性の被殻に限局しているのか、直接の引き金は何なのか等、今後症例の集積による解明が待たれる。

#### 〈付記〉

論文中の MRI 画像はすべて GE 法 Signal 1.5T を用い 7mm スライスで撮像した。用いたパルス系列は以下の通りである。

T1 強調画像(SE 法, TR/TE=500/13 ms), T2 強調画像(FSE 法, TR/TE=4000/106 ms), T2\* 強調画像(GRE 法, TR/TE=500/17.3 ms, FA=25°), 拡散強調画像(EPI 法, TR/TE=4000/91.2 ms, b value=1000 s/mm<sup>2</sup>), MRA (TOF-SPGR 法, TR/TE=36/6.9 ms), MRA に関しては 1.2 mm スライスにて撮像。

#### 文 献

- 1) Bedwell SF (1960) Some observation on hemiballismus. *Neurology* 10: 619-622
- 2) Schwarz GA, Barrows LJ (1960) Hemiballismus without involvement of Luys' body. *Arch Neurol* 2: 420-434
- 3) Rector WG, Herlong HF, Moses H (1982) Nonketotic hyperglycemia appearing as choreoathetosis or ballismus. *Arch Intern Med* 142: 154-155

- 4) Nagai C, Kato T, Katagiri T, Sasaki H (1994) Hyperintense putamen on T1-weighted MR images in a case of chorea with hyperglycemia. *AJNR* 16:1243-1246
- 5) 高松和弘, 大田泰正, 佐藤昇樹, 佐能 昭, 高橋一則, 村上祐二, 吉久宏一, 佐藤倫由, 大田浩右 (1995) 糖尿病患者にみられた線条体病変に伴う Hemichorea-hemiballism の2例. *脳神経* 47:167-172
- 6) Yahikozawa H, Hanyu N, Yamamoto K, Hashimoto T, Schimozono K, Nakagawa S, Yanagisawa N (1994) Hemiballism with striatal hyperintensity on T1-weighted MRI in diabetic patients: a unique syndrome. *J Neurol Sci* 124:208-214
- 7) Lai PH, Tien RD, Chang MH, Teng MM, Yang CF, Pan HB, Chen C, Lirng JF, Kong KW (1996) Choreo-ballismus with nonketotic hyperglycemia in primary diabetes mellitus. *AJNR* 17:1057-1064
- 8) Chu K, Kang DW, Kim DE, Park SH, Roh JK (2002) Diffusion-weighted and gradient echo magnetic resonance findings of hemichorea-hemiballismus associated with diabetic hyperglycemia: a hyperviscosity syndrome? *Arch Neurol* 59:448-452
- 9) 周藤 豊, 森 昌忠, 鍵本比呂志, 斉藤 閏 (2004) T2\*強調 gradient-echo MRI にて線条体が低信号を呈した高血糖にともなう hemichorea の1例. *臨床神経* 44:86-90
- 10) 華房順子, 工藤 寛, 千葉陽一 (1999) Hemichorea を呈したコントロール不良糖尿病の2例. *糖尿病* 42:751-757
- 11) 石橋昌也, 菊池昭夫, 武田 篤, 小野寺淳一 (2006) 線条体の一部に微小出血を伴った糖尿病性舞踏病の1例—T2\*強調 MRI と磁気共鳴スペクトロコピーによる検討. *脳卒中* 28:301-305

**Abstract**

**Cranial Magnetic Resonance Imaging of Diabetic Chorea : Report of a Case  
and Review of the Literature**

Sachie Tsuzura<sup>\*1</sup>, Shuichi Nakayama<sup>\*1</sup>, Masahiro Yamasaki<sup>\*2</sup>, Naohisa Hamashige<sup>\*3</sup>,  
and Yoshitaka Kumon<sup>\*4</sup>

<sup>\*1</sup> Department of Diabetes and Endocrine Medicine, Chikamori Hospital, Kochi, Japan

<sup>\*2</sup> Department of Neurology, Chikamori Hospital, Kochi, Japan

<sup>\*3</sup> Department of Internal Medicine, Chikamori Hospital, Kochi, Japan

<sup>\*4</sup> Department of Laboratory Medicine, Kochi Medical School, Kochi University, Kochi, Japan

A 81-year-old woman admitted for involuntary right-side movement of the body for eight days prior to admission. On admission, this movement was diagnosed neurologically as hemichorea. Voluntary plasma glucose was 422 mg/dl and HbA<sub>1c</sub> 13.4%. Hemichorea disappeared a few days after insulin therapy was begun, and no relapse occurred. The definitive diagnosis was diabetic chorea. Brain magnetic resonance imaging (MRI) showed a high-intensity area in T1-weighted MRI and a low-intensity area in T2\*-weighted MRI in the left putamen. Interestingly, magnetic resonance angiography (MRA) showed an oozing-like intensity area with an irregular margin in the left putamen, which was not reported previously as a characteristic finding of diabetic chorea. This characteristic MRA finding disappeared four months later. We studied brain MRI findings of diabetic chorea based on our case and 9 others previously reported, concluding that these findings in the left putamen on T2\*-weighted MRI and MRA are useful for diagnosing diabetic chorea.