

上肢ジストニア（書痙，奏楽手痙を含む）に対する ボツリヌス毒素療法，MAB 療法

Botulinum toxin therapy and muscle afferent block therapy for upper limb dystonia patients including writer's clamp and musician's cramp

堀内正浩¹⁾，佐藤雅幸²⁾

Masahiro HORIUCHI¹⁾, Masayuki SATO²⁾

抄 録

上肢ジストニア（書痙，奏楽手痙）に対するボツリヌス毒素療法（Botulinum toxin therapy：BTX）・MAB 療法（muscle afferent block）について検討した。2021 年 9 月時点で，針筋電図を用い上肢ジストニア（書痙，奏楽手痙）の患者に対して BTX 療法や MAB 療法を継続している患者 18 名（男性 9 名，女性 9 名，平均年齢 53.3 歳，平均投与回数 18.9 回）について検討した。疾患は，書痙が 7 例，奏楽手痙が 3 例，上肢ジストニア（範囲が広いもの）が 8 例であった。症状を分類すると①母指が屈曲するもの ②手首が掌屈するもの ③手首が背屈するもの ④範囲が広いもの ⑤母指以外の指に局限するもの 5 種類であった。全例において BTX 療法や MAB 療法の有効性が認められ治療が継続されており，有害事象も認められなかった。上肢ジストニア（書痙，奏楽手痙）には BTX 療法や MAB 療法は有用であるが，注射部位の選択には注意を要する。

Abstract

We investigated botulinum toxin therapy (BTX) and muscle afferent block (MAB) therapy for upper limb dystonia (writer's cramp and musician's cramp). As of September 2021, 18 patients (nine males and nine females; mean age, 53.3 years; mean number of doses, 18.9) receiving BTX or MAB therapy for upper limb dystonia using needle electromyogram were studied. The diseases included writer's cramp in seven cases, musician's cramp in three cases, and upper limb dystonia (wide range) in eight cases. Symptoms were classified into five types, including: 1) flexion of the thumb, 2) palmar flexion of the wrist, 3) dorsiflexion of the wrist, 4) cramps over a large area of the hand, and 5) those limited to fingers other than the thumb. In all patients, the efficacy of BTX and MAB therapy was confirmed and treatment was continued, and no adverse events were observed. It was found that BTX and MAB therapy are useful for upper limb dystonia, but care should be taken in selecting the injection site of the muscle.

1) 箱根リハビリテーション病院脳神経内科，川崎市立多摩病院神経内科（Department of Neurology, Hakone Rehabilitation Hospital, Department of Neurology, Kawasaki Municipal Tama Hospital）

2) 専修大学スポーツ研究所（Senshu University Institute Sport）

Keywords : upper limb dystonia, writer's cramp, musician's cramp, Botulinum toxin therapy, muscle afferent block therapy

I. 緒 言

ジストニアは、神経内科の領域において運動プログラムの欠損と診断され、治療が難しい疾病とされてきた。佐藤らは、JSPS 科研費（課題番号 25350780 基盤研究 C）の助成を受け、「スポーツにおけるイップスとジストニアの関係」について半構造化面接を行い、発症の時期および原因について明らかにしてきた（佐藤ほか、2008；2011；2014）。しかしながら、イップスおよびジストニア発現時の神経筋活動のメカニズムの詳細については、未だ不明な点が多く、さらなる研究が求められている。

ジストニアは、基底核、視床、小脳、大脳皮質など、脳のいくつかの領域が過剰に反応することによって、運動や姿勢の保持などのコントロールができなくなる症状を呈するもので、全身性ジストニアおよび局所性ジストニアに分類、診断される。スポーツ選手に発症するイップスは、局所性ジストニアの症状と共通するものがあり、手や指を使う音楽家（ピアニスト、ギタリストなど）や作家（書痙）などに見られる職業性ジストニアとも共通している。

ギタリストの指に触刺激を与えたときの大脳皮質感覚野の応答部位の活動に関する研究では、罹患していない指を動かした場合、大脳皮質の活動部位がそれぞれ分離・独立しているのに対して、ジストニア症状を呈している指を動かそうとすると、大脳皮質の活動部位が重なり、不随意動作が発症するものと推察している（工藤、2008；Elbert et al., 1989）。加えて筆者らは、野球の投

球動作、テニスのサービストス、ゴルフのパッティングにおける上肢にみられるイップス症状は、書痙、奏楽手痙といった上肢ジストニアと共通するものと考えている（佐藤ほか、2014）。

神経内科における上肢ジストニアの治療には、内服療法や定位脳手術等があるが、本研究では、スポーツにおけるイップス治療にも応用可能で、可逆的かつ効果の高いボツリヌス毒素療法（Botulinum toxin therapy 以下 BTX 療法）、muscle afferent block therapy（以下 MAB 療法）の、上肢ジストニア（書痙、奏楽手痙を含む）の治療への有効性について検討した。

II. 方法および対象

対象者は、2021 年 9 月時点で、針筋電図を用い上肢ジストニア（書痙、奏楽手痙）に対して、ボツリヌス療法および MAB 療法を継続している患者であった（Fig. 1）。対象者の内訳は、男性 9 名、女性 9 名、合計 18 名、平均年齢 53.3 歳であり、平均投与回数 18.9 回について検討した（Table 1）。また、疾患は、書痙 7 例、奏楽手痙 3 例、上肢ジストニア（範囲が広いもの）が 8 例であった。

治療は、針筋電図を用い BTX 療法か MAB 療法を施行した。BTX を筋肉内注射の目的は、神経終末からの遊離を抑えてジストニアの症状を抑えることであった。MAB 療法とは、0.5%のリドカイン注射にて筋肉の知覚入力（muscle afferent）をブロックしてジストニアの症状を緩和させ、効果を持続させる効果があり、無水エタノールを加えて筋肉にダメージを与える。両者は用量比

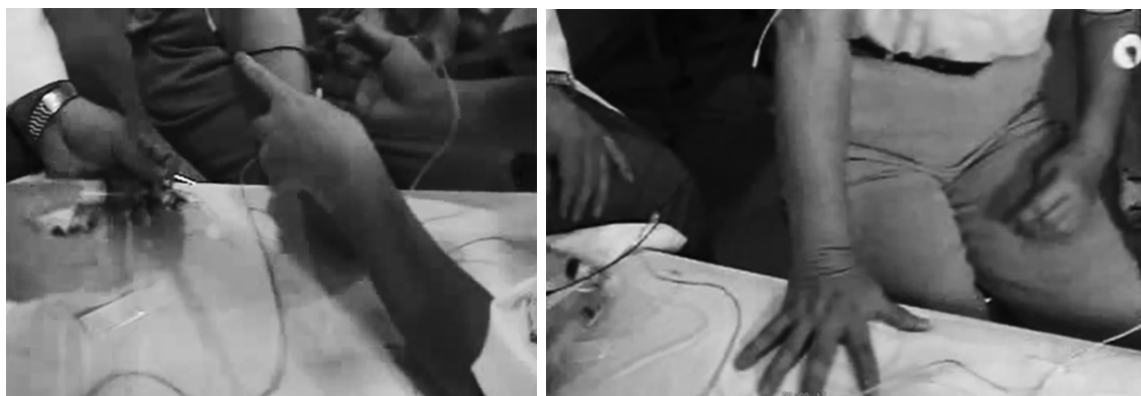


Fig 1. Muscle afferent block (MAB) therapy status

Table 1. Objects and therapeutic point

Number	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12	13	14	15	16	17	18
Initial	H.T.	S.A.	Y.M.	T.F.	E.O.	M.M.	S.M.	Y.Y.	K.H.	A.K.	Y.S.	A.K.	M.S.	K.T.	M.Y.	H.Y.	A.K.	K.K.
Age	61	73	35	52	56	73	60	50	42	37	62	24	57	61	62	21	58	75
Gender	M	M	F	F	F	F	F	M	M	F	M	F	F	M	M	F	M	M
Diagnosis	WC	WC	WC	MC	ULD	ULD	ULD	ULD	ULD	WC	ULD	WC	WC	ULD	WC	MC	MC	ULD
Side	R	R	R	R	R	R	R	R	R	R	L	R	R	R	R	L	L	R
Therapeutic times	54	50	35	1	21	20	22	10	33	8	17	3	23	12	24	6	1	2
Classification	①	①	①	①	②	②	②	②	②	③	③	④	④	④	⑤	⑤	⑤	⑤
Trapezius										BTX				BTX				
Supraspinatus														BTX				
Infraspinatus														BTX				
Biceps brachii									BTX									
Brachioradialis										BTX	BTX	BTX						
Triceps brachii														BTX				
Supinator														BTX				
Pronator teres																	BTX	BTX
Extensores carpi radialis										BTX		BTX	BTX	BTX				
Flexor carpi radialis						BTX	BTX	BTX	BTX									
Flexor carpi ulnaris						BTX	BTX	BTX	BTX									
Extensor indicis															BTX			
Extensor pollicis brevis													BTX					
Extensor pollicis longus													BTX					
Lumbricalis manus																BTX		
Flexor digitorum superficialis					BTX													
Flexor digitorum profundus					BTX													
Flexor pollicis longus	MAB	MAB	BTX	BTX				BTX	BTX			BTX						
Dorsal interossei manus															BTX	BTX		
Adductor pollicis				BTX														

* Diagnosis : WC: writer's clamp, MC: musician's clamp, ULD: upper limb dystonia

* Classification : ① flexion of the thumb ② palmar flexion of the wrist ③ dorsiflexion of the wrist ④ cramps over a large area of the hand
⑤ those limited to fingers other than the thumb

10 : 1 で異なるシリンジに準備し，三方活栓にて連結して筋肉内注射をする（Kaji et al., 1995）.

Ⅲ. 結果および考察

書痙，奏楽手痙，上肢ジストニア（範囲が広いもの）の症状を呈している患者 18 名に対して，BTX 療法および MAB 療法を実施した結果，以下の事が明らかとなった.

書痙については，7 例中 7 例で書字レベルが回復した. 奏楽手痙では，3 例中，3 例で楽器演奏レベルが改善した. また，上肢ジストニア（範囲が広いもの）でも，8 例中 8 例が回復したが，レベルは様々であった. 対象者の症状を大別すると①母指が屈曲するもの ②手首が掌屈するもの ③手首が背屈するもの ④範囲が広いもの ⑤母指以外の指に限局するものに分類され，回復レベルの差はあるものの，前例において BTX 療法お

よび MAB 療法治療の有効性が認められており，治療は現在も継続している（Fig. 2）. また，有害事象も現在まで認められていない.

書痙などの上肢ジストニアの治療では，ボツリヌス療法が多く用いられており，科学的なエビデンスも有していることから有益な治療であるが，施注量・施注法（投与部位など）の決定が難しく，施注には熟練を要する. ボツリヌス治療の要諦は，いかに的確な治療対象筋を同定し，的確な間隔で的確に注射するか，これに尽きると述べている（梶，2013；Fig. 3）. 本症例において BTX 療法，MAB 療法によって治療効果が認められた原因としては，施注量，施注投与箇所，投与期間などが適切だったことが影響しているものと推察される. また，上肢ジストニアの原因筋の同定については，針筋電図の放電を確認することによって診断したことが，治療効果を高めた要因だと思われる.

ジストニア診療ガイドライン 2018 では，書痙への治



Fig 2. Writer's cramp

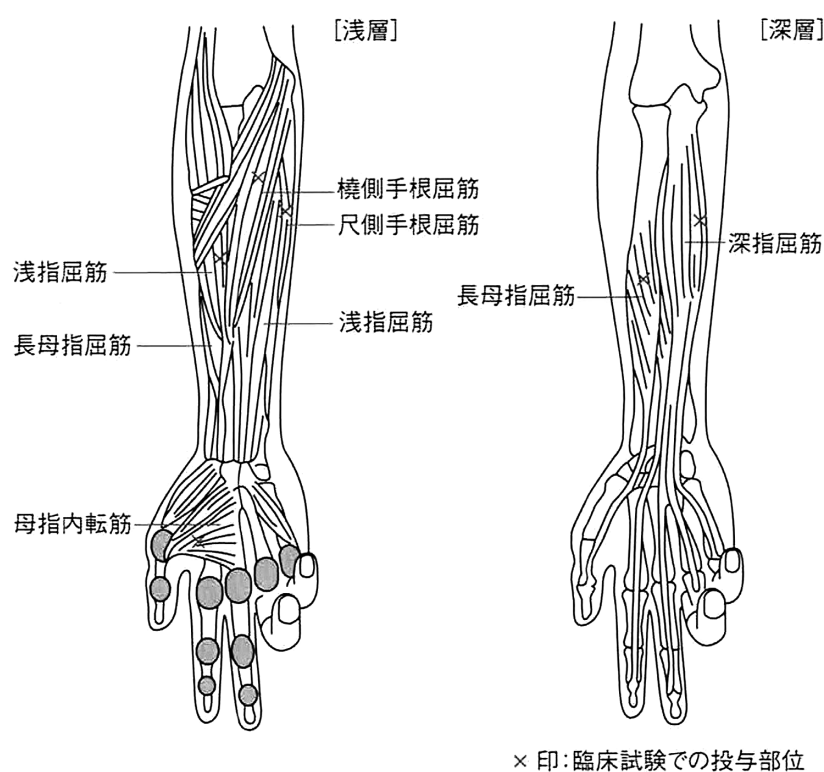


Fig 3. Administration site for upper limb spasticity
(ジストニアのすべて最新の治療法：診断と治療社 P101 より)

療の第一選択はボツリヌス治療である [1A：強く推奨する，効果が強く確信が持てる] とされているが，過剰活動筋を同定し，筋電図ガイドで注射が出来る施設は限られているのが現状である．抗コリン薬が副作用等で内服困難な例や，書痙やアマチュア音楽家等の定位脳手術を受ける程ではない上肢ジストニア患者に対しては，BTX療法やMAB療法は有効で安全な治療であると推察された．

IV. 結 論

上肢ジストニア（書痙，奏楽手痙）の治療にはBTX療法やMAB療法は有用であるが，施注部位の選択および施注量には注意を要する．

VI. 参考文献

堀内正浩ほか（2011）：外傷後ジストニア：自験14例の検討．神経治療：28：177-82

- Jaume Rosset i Lobet, Silvia Fabregas i Molas 編，平孝臣，堀内正浩 監修，NPO 法人ジストニア友の会 訳（2012）：どうして弾けなくなるの？〈音楽家のジストニア〉の正しい知識のために，音楽之友社：113.
- Kaji R, Rothwell J.C., Katayama M, Ikeda T, Kubori T, Ohara N, Mezaki T, Shibasaki H and Kimura J (1995) : Tonic vibration reflex and muscle afferent block in writer's clamp. *Ann Neurol* 38: 155-162.
- 梶龍兒，堀内正浩（2012）：ジストニア診断とケアマニュアル，診断と治療社：20-39.
- 梶龍兒（2013）：ジストニアのすべて——最新の治療指針——，診断と治療社，93-106.
- 工藤和俊（2008）：イップス（YIPS）と脳：体育の科学：vol.58 No2.
- McDaniel KD, Cummings JL and Shain S (1989): The “yips”: a focal dystonia for golfers. *vNeurology* 39: 192-195.
- 日本神経学会監修「ジストニア診療ガイドライン作成委員会」編集 ジストニア診療ガイドライン（2018）：南江堂：106-116.
- 佐藤雅幸（2008）：テニスとイップス，テニスマガジン，6：44-47.
- 佐藤雅幸（2011）：イップスにみる心と身体の関係，第16回身体運動文化学会大会予稿集.4
- 佐藤雅幸，堀内正浩，佐藤周平，齋藤実，佐藤文平，平田大輔（2014）：テニスにおけるイップとジストニアとの関係（その1）」*テニスの科学*，22:116-117.
- 玉川聡，魚住武則，辻貞俊（2007）：Task-specific dystonia. *神経内科* 67：46-52.

付記：本研究の成果の一部は，令和3年（2021）年度，JSPS 科研費（課題番号 21K11529 基盤研究 C）の助成を受けた。