

〈症例報告〉

## 血管炎性ニューロパチーにおける時間的分散 (temporal dispersion) : 電子顕微鏡的微細構造解析

白河 俊一<sup>1)</sup>, 大澤 裕<sup>1)</sup>, 黒川 勝己<sup>2)</sup>, 西村 広健<sup>3)</sup>, 久徳 弓子<sup>1)</sup>  
逸見 祥司<sup>1)</sup>, 村上 龍文<sup>1)</sup>, 三原 雅史<sup>1)</sup>, 砂田 芳秀<sup>1)</sup>

1) 川崎医科大学神経内科学

2) 川崎医科大学総合医療センター神経内科

3) 川崎医科大学病理学

**抄録** 症例は35歳男性。32歳のときに右腓腹神経・足底神経支配領域の異常感覚で発症し、その後、左腓腹神経・足底神経領域、両側尺骨神経領域に感覚障害が拡大した。神経伝導検査では、左脛骨神経複合筋活電位において、時間的分散の所見が認められた。腓腹神経生検では、神経上膜にフィブリノイド壊死を伴う壊死性血管炎を認めた。エポソ包埋トルイジン青染色では、有髄神経線維の脱落が著明であり、髄鞘の薄い再生軸索が認められた。電子顕微鏡による観察では、脱髄は認められず、軸索の再生が認められたが、髄鞘再生に乏しい thin myelin が特徴的であった。神経伝導検査で、伝導ブロックや時間的分散といった脱髄を疑う所見を呈する血管炎性ニューロパチーについて24例の報告があるが、これまで電子顕微鏡による観察はされていない。血管炎性ニューロパチーによって惹起される時間的分散の出現機序について、微細構造所見を基に考察する。

doi:10.11482/KMJ-J202248079 (令和4年10月17日受理)

キーワード：血管炎性ニューロパチー，時間的分散

### 緒言

末梢神経は、さまざまな直径の神経線維の集合であるため、神経線維ごとに伝導速度は多様である。神経伝導検査において、伝導速度の遅い有髄線維に伝導遅延が生じると、複合筋活動電位 (compound muscle action potential : CMAP) の持続時間が延長する。これを時間的分散 (temporal dispersion) の増大、または単に時間的分散という。脱髄性ニューロパチーでは、しばしば時間的分散が増大することが特徴とされる<sup>1)</sup>。

われわれは、時間的分散 (temporal dispersion)

を示す血管炎性ニューロパチーを経験したので、電子顕微鏡による微細構造所見を基にその出現機序を考察する。

### 症例

症例は35歳代男性。主訴は下肢の異常感覚と筋力低下。X-3年1月に右足外側の腓腹神経領域に、触ると鈍い感じが出現した。X-3年5月に左足全体のビリビリした疼痛が出現し、X-3年7月まで持続した。X-3年12月、右第5足趾にも疼痛が出現し、X-2年1月当院神経内科に

別刷請求先

白河 俊一

〒701-0192 倉敷市松島577

川崎医科大学神経内科

電話：086 (462) 1111

ファックス：086 (462) 1199

Eメール：awakarihs@med.kawasaki-m.ac.jp

入院し、非全身性血管炎性ニューロパチーと診断した。プレドニゾロン55 mg/日経口投与を開始し、症状は緩和した。プレドニゾロン6 mg/日に漸減されたX年4月に、右足部と下腿に疼痛様異常感覚と筋力低下が出現し、X年5月精査目的で当科に入院した。既往歴および家族歴では特記事項なし。喫煙歴および飲酒歴はなかった。

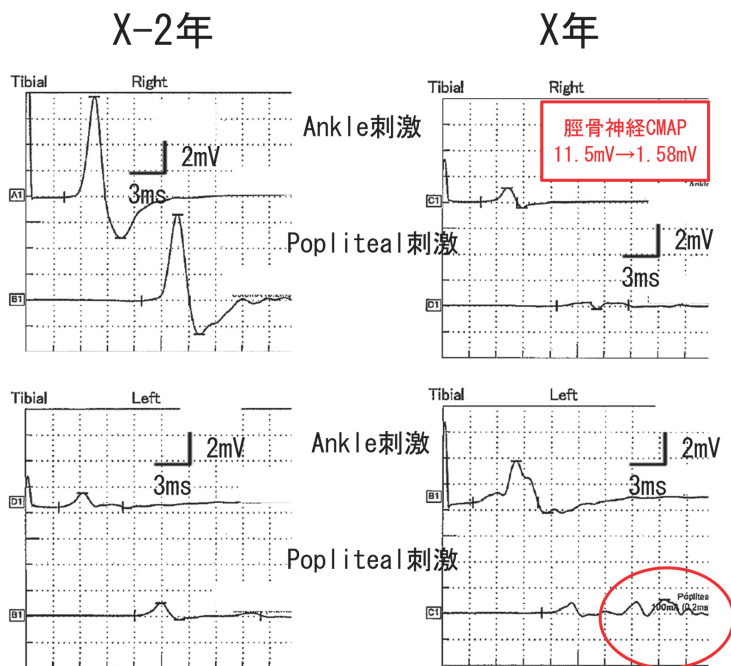
入院時現症、血圧 119/76 mmHg。脈拍数 79 回/分・整。体温 36.6 °C。関節痛や皮疹は認めなかった。神経学的所見では両腓腹神経領域（右優位）と両側尺骨神経領域（左優位）に異常感覚と表在覚鈍麻がみられた。徒手筋力検査（MMT）では、長趾屈筋（4-/4）、長母趾伸筋（4-/4）・母趾外転筋（5-/5）と低下を認めた。それ以外の徒手筋力は正常であった。両アキレス腱反射は消失していた。自律神経障害は認められなかった。血液検査所見では、血沈は 2 mm（60分）（1-10 mm），末梢血白血球  $8.81 \times 10^3/\mu\text{L}$ （3100-8400 / $\mu\text{L}$ ），CK 141 U/L（59-248 U/L），HbA1c 5.7 %（4.9-6.0 %），抗核抗体（ANA）17.2倍（< 20倍），PR-ANCA 2.4 U/MI（< 3.5 U/mL），MPO-ANCA < 1.0 U/mL（< 3.5 U/mL），抗 SS-A 抗体 < 1.0 U/mL（< 10 U/mL），抗 SS-B 抗体 1.4 U/mL（< 10 U/mL），抗 ds-DNA IgG 抗体 < 10 IU/mL（< 25 U/mL），ビタミン B1 38 ng/mL（24-66 ng/mL），ビタミン B12 667 pg/mL（233-914 pg/mL），葉酸 6.4 ng/mL（3.6-12.9 ng/mL）。脳脊髄液検査では、髄液細胞数 0.3/ $\mu\text{L}$ （単核球 100%），髄液蛋白 43 mg/dL（10-40 mg/dL），髄液糖 59 mg/dL（50-75 mg/dL），ミエリン塩基性蛋白 < 31.3 pg/mL（0-102 pg/mL），オリゴクローナルバンド陰性，IgG インデックス 0.5（0.3-0.7）であった。尿所見は、比重 1.017（1.005-1.030），ウロビリノーゲン正常，潜血（-），ビリルビン（-），ケトン体（-），糖（-），蛋白（-），pH 5.5（5.0-7.5），細菌（-），円柱 0/LPF，赤血球 0/HPF，白血球 0/HPF であった。

神経伝導検査では、右脛骨神経における CMAP 振幅は、X-2年1月の時点では11.5 mV

であったが、今回 1.58 mV と低下していた。また、左脛骨神経 CMAP では、時間的分散が特徴的であった（図1）。そこで、X-2年1月に施行した右側腓腹神経生検について、神経線維の状態についてグルタルアルデヒド固定標本にて詳細に再検討した。エポソ包埋 1  $\mu\text{m}$  切片標本のトルイジン青染色では、有髄線維の高度の脱落が認められ、わずかに残存する有髄線維は髄鞘の薄い（thin myelin）再生線維が主体で、明瞭な髄鞘を有さない軸索もみられた。ときほぐし標本では残存神経線維が少なく評価困難であった。そこで電子顕微鏡にて超微形態の観察を行った。Bungner 帯の形成を含め軸索再生が随所でみられた。再髄鞘化に乏しいものが主体で、thin myelin を伴う再生 cluster は、一部で少量みられる程度であった。Schwann 細胞の脱落も認められた。超微形態においても、脱髄は認められなかった（図2）。

入院後経過：2010年の Peripheral Nerve Society の診断基準<sup>2)</sup>のうち、血管炎性ニューロパチー病理学的基準(definite: フィブリノイド壊死や、内膜の増殖がみられ、リンパ腫、リンパ腫様肉芽腫症、またはアミロイドーシスを示唆する所見はない)、全身性血管炎の除外基準(末梢神経以外の臓器に血管炎所見がない、膠原病自己抗体陰性、クリオグロブリン陰性、血沈100 mm/h 以下、血管炎に関連する感染症も陰性、サルコイドーシス、炎症性腸疾患、悪性腫瘍、補体正常、皮疹なし)も満たすことから、非全身性血管炎性ニューロパチー(Nonsystemic vasculitic neuropathy)と診断した。神経伝導検査で時間的分散の所見を認めたことから、当初は脱髄性ニューロパチーの可能性も考えたが、組織所見から否定され、血管炎性ニューロパチーを基盤とする時間的分散と判断した。血管炎の再燃と考え、入院日からステロイドパルス療法を開始し合計2クール行い、プレドニゾロンの内服量を30 mg/日に増量したところ、両側長母趾伸筋・母趾外転筋の MMT は4から5に改善し、右足底部の触覚鈍麻は5点から7点と軽減が認められた。

## 脛骨神経



## 腓腹神経

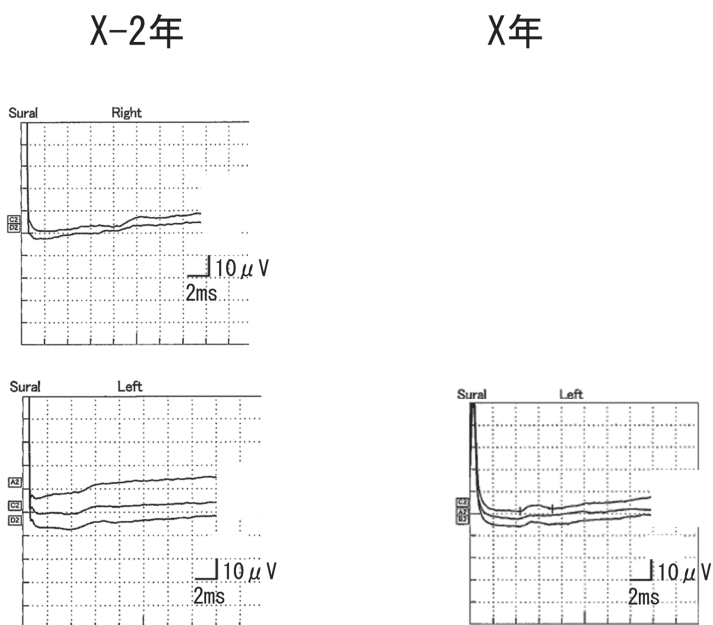


図1 神経伝導検査

X-2年1月と比較して、X年の神経伝導検査では右脛骨神経のCMAP振幅は11.5 mVから1.58 mVと、さらに低下し、左脛骨神経では、時間的分散 (temporal dispersion) 様の所見を認められた。感覚神経では尺骨神経、腓腹神経のSNAP振幅は低下していた。

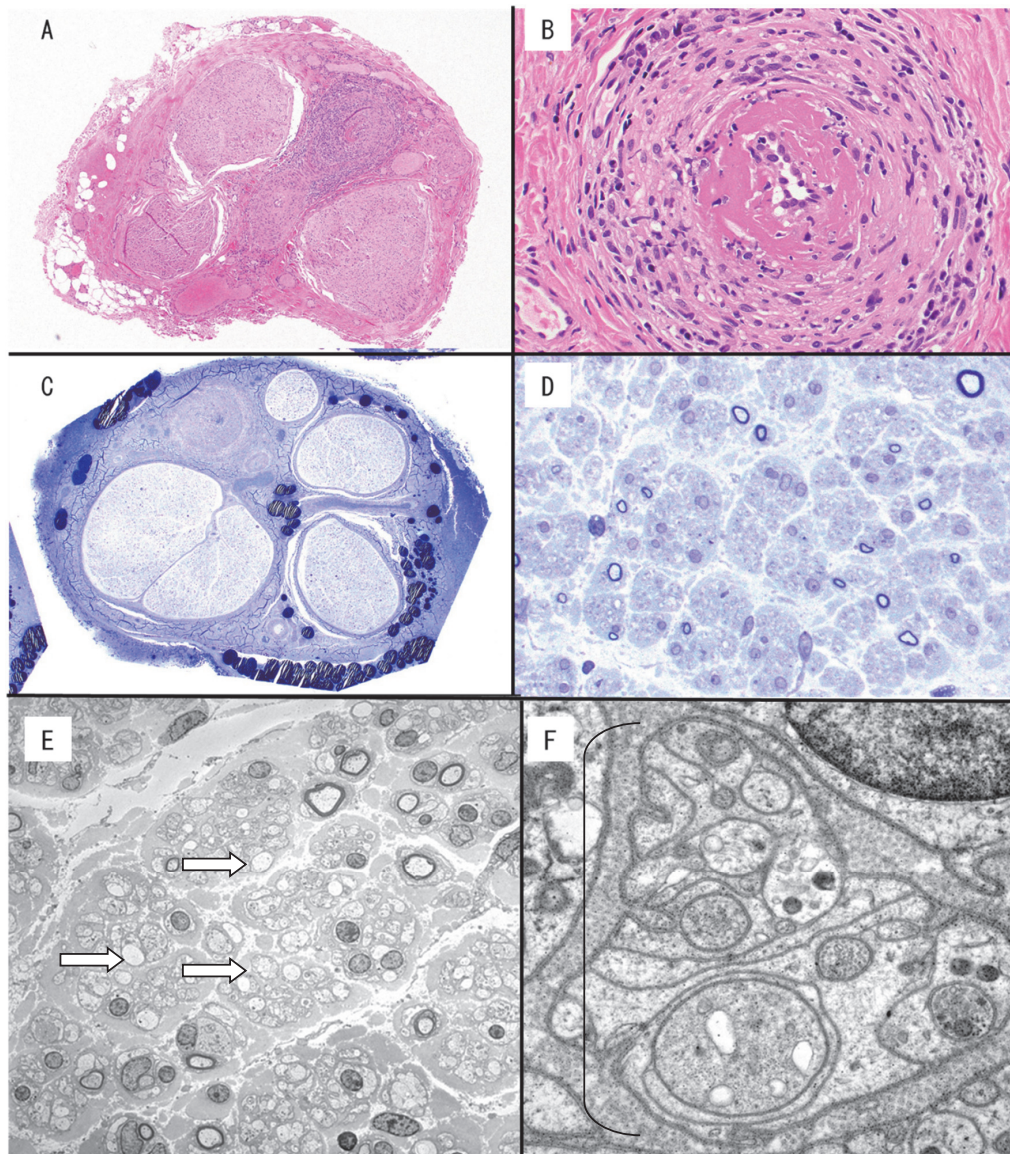


図2 神経生検の病理像

A. HE染色. 神経上膜に壊死性全層性血管炎.

B. 拡大像. 神経上膜内血管にフィブリノイド壊死.

C. エボン包埋1 $\mu$ m切片標本(トルイジン青染色). 有髄線維の高度脱落.

D. 拡大像. 高度な有髄線維脱落があり, 薄層(thin walled myelin)の有髄線維が散在.

E. 電子顕微鏡像. 有髄線維の高度脱落を認め, 再髄鞘化に乏しい軸索再生を認める(白矢印).

F. Bungner帯(黒括弧)を伴う軸索再生像を認める.

## 考察

腓腹神経の電子顕微鏡観察により, 脱髄ではなく, 血管炎による虚血後の未熟な軸索再生が, その顕微構造的基盤となる時間的分散を示し

た血管炎性ニューロパチーを経験した.

神経伝導検査において, 脱髄を示唆する所見(伝導ブロック, 偽伝導ブロック, 時間的分散)を示した血管炎性ニューロパチーが, 報告され

ている (表).

伝導ブロック, 偽伝導ブロックについては24例の報告がある. このうち7例 (症例6, 14, 15, 16, 17, 18, 19) では腓腹神経生検が実施され, 症例15を除いた6例は, 組織学的には脱髄所見はなく, 軸索障害所見が主体の血管炎が原因であると報告している. Geldhill らの1例 (症例1) では, 神経伝導検査で伝導ブロックを認めているが, 機序としてワラー変性もしくは軸索性伝導障害によるのではないかと推測している<sup>3)</sup>. David らの3例 (症例2, 3, 4) では, 3例とも神経伝導検査で伝導ブロックを認めている. 機序として虚血超急性期では, 節性脱髄が起きることで伝導ブロックが一過性に生じるのではないかと推測している<sup>4)</sup>. Magistris らの1例 (症例5) では, 血管炎による伝導ブロックの機序は明らかではないが, 代謝性要因や脱髄の病態があるのではないかと推測している<sup>5)</sup>. 本田らの1例 (症例6) では, 腓腹神経生検では様々な段階の軸索崩壊像を伴う有髄線維の脱落が確認された. 壊死性血管炎や血管閉塞, 再開通所見など虚血を示唆する病理像がなかったことから, 好酸球が神経束内に浸潤し組織障害性蛋白が放出され, 軸索膜上のナトリウムチャンネル障害, 傍絞輪部の terminal myelin loop の剥離などをきたすことで伝導ブロックや伝導遅延を呈したのではないかと推察している<sup>6)</sup>. Angele らの5例 (症例7, 8, 9, 10, 11) では, すべて軸索変性があり, それにより伝導ブロックをきたしたのではないかと推測している<sup>7)</sup>. Jamieson の1例 (症例12) では, 神経伝導検査で伝導ブロックを認めた. その機序として, 血管炎による虚血で軸索障害が生じ, ワラー変性が起こることによるものではないかと推測している<sup>8)</sup>. Armin らの1例 (症例15) では, ときほぐし標本で45%に節性脱髄, 5%に軸索損傷を認めた. 血管炎による虚血により二次的に脱髄を起こしたのではないかと推測している<sup>10)</sup>. McCluskey らの3症例 (症例16, 17, 18) では, 腓腹神経生検は軸索障害の所見で, 脱髄所見は認められなかった. 虚血

による重度の軸索障害により, 二次的に局所の軸索性伝導遅延が生じ, 伝導ブロックが生じたのではないかと推測している<sup>11)</sup>. Sandbrink らの1例 (症例19) でも, 神経生検では脱髄所見はなかった. 神経伝導検査での伝導ブロック様の所見は軸索障害による不完全なワラー変性による変化であったのではないかと考察している<sup>12)</sup>. 黒川の1例 (症例21) では, 治療から17日後の神経伝導検査で遠位部刺激の CMAP が消失していた. 虚血による変化ではないかと推測している<sup>14)</sup>. 長谷らの3症例 (症例22, 23, 24) は, 偽伝導ブロックの出現し, 発症からの日数が短く, 白血球数, 好酸球数が高い傾向が特徴であったと報告している<sup>15)</sup>.

本例で認められたような時間的分散については, これまで2例 (症例13, 20) の報告があるが, 残念ながら神経生検は実施されていない. 長谷川らの症例13では, 血管炎回復期に神経伝導検査で刺激閾値の大きいM波後期成分の所見を認めている. 本文中では時間的分散という言葉は使用されていないが, 電気生理的には時間的分散の所見が認められた. 血管炎に伴い一部の線維に軸索変性が生じ, その再生線維群の伝導速度が低下して刺激閾値の大きいM波後期成分の所見を生じたのではないかと推察している<sup>9)</sup>. また, Rechdi らの報告 (症例20) でも, 本例同様の時間的分散があり, 伝導ブロックの所見を認めている. 重度の虚血による軸索障害がおこった後で, 神経線維が再生する過程で, 伝導ブロック, 時間的分散の所見を生じたのではないかと推察されている<sup>13)</sup>.

以上のような電気生理学的所見に基づき, 血管炎性ニューロパチーでは神経上膜の血流障害により<sup>19, 20)</sup>, その灌流領域の有髄神経線維が障害・脱落する<sup>16, 17)</sup>. これにより, まず血流障害部位で節性脱髄が生じ始め伝導ブロックが認められる<sup>7, 12)</sup>. 次いで, 血流障害から遠位部では, 軸索の Waller 変性によって, 一過性に偽伝導ブロックが認められ<sup>14, 18)</sup>, さらに未熟な軸索再生と再髄鞘化によって, 時間的分散 (temporal dispersion) が生じると<sup>13)</sup>, 考察されてきたが,

表 伝導ブロック, 偽伝導ブロック, 時間的分散を示した血管炎性ニューロパチー

症例	年性	診断名	全身所見	神経伝導検査			生検		文献・ 発表年数	
				被検神経	所見			血管炎		神経病理
					CB	pseudo CB	TD			
1	42M	血管炎	血沈 65 mm/hr, CPK 13,783 U/L, 平滑筋抗体 80倍	Median Tibial	+	-	-	血管周囲に炎症細胞浸潤	記載なし	Gledhill 1995 <sup>2)</sup>
2	64F	monomelic neuropathy	糖尿病, 慢性腎不全	Median	+	-	-	記載なし		David 1993 <sup>4)</sup>
3	68M		高血圧, 腎不全	Median						
4	63F		糖尿病, 慢性腎不全	Median						
5	28M	結節性多発動脈炎	血沈 60 mm/hr, Plt 420,000/mm <sup>3</sup> , CRP 7.19 mg/dL	Median	+	-	-	記載なし		Magistris 1994 <sup>5)</sup>
6	74F	好酸球性多発血管 炎性肉芽腫症	気管支喘息, WBC 29.13×10 <sup>3</sup> /μL, 好酸球 19,800/μL, IgE 3,925 IU/ml	Tibial	+	-	-	壊死性血管炎や, 肉芽腫形成なし	軸索崩壊を伴う有 髓神経線維の脱落, 神経上膜に多数の好 酸球浸潤	本田 2021 <sup>6)</sup>
7	80F	結節性多発動脈炎	記載なし	Ulnar	+	-	-	記載なし		Angele 1990 <sup>7)</sup>
8	60F	結節性多発動脈炎	記載なし	Tibial						
9	62F	好酸球性多発血 管炎性肉芽腫症	気管支喘息, 紫斑	Peroneal						
10	76F	結節性多発動脈炎	記載なし	Peroneal						
11	89F	結節性多発動脈炎	記載なし	Peroneal						
12	59F	壊死性血管炎	記載なし	Ulnar	+	-	-	壊死性血管炎像	記載なし	Jamieson 1991 <sup>8)</sup>
13	66F	好酸球性多発血管 炎性肉芽腫症	好酸球数 43,700/mm <sup>3</sup>	Ulnar	+	-	+	記載なし		長谷川 1998 <sup>9)</sup>
14	62M	非全身性血管炎性 ニューロパチー	記載なし	Ulnar	+	-	-	神経内膜の動脈狭 小化・閉塞	大径・小径線維密度 の低下, myelin ovoid	
15	62M	血管炎	記載なし	Median	+	-	-	神経上膜周囲に単 核球浸潤, 多形核 球浸潤で血管壁の 壊死	高度の有髓線維の脱 落, ときほぐし標本 で節性脱髓	Armin 1998 <sup>10)</sup>
16	61M	好酸球性多発血管 炎性肉芽腫症	WBC 30,000/mm <sup>3</sup> (64%好酸球), IgE 1,775 mg/dL, CPK 2,460 U/L, MPO-ANCA 263 U/L	Ulnar	-	+	-	神経周囲動脈の内 膜線維化	軸索障害	McCLUSKEY 1999 <sup>11)</sup>
17	70F	リウマチ性血管炎	記載なし	Median				神経周囲血管に壊 死性血管炎	軸索障害, 神経内膜 の浮腫	
18	47M	結節性多発動脈炎	網状皮斑, 血沈 56mm/hr, 抗核抗体 160倍	Ulnar Tibial				血管周囲の細胞浸 潤	ときほぐし標本で軸 索障害はみられた が, 脱髓はない	
19	63M	好酸球性多発血管 炎性肉芽腫症	WBC 26,400/μL (好酸球 49%), CPK 1,090 U/L, 抗核抗体 80倍, PR3-ANCA 160倍	Median	-	+	-	血管周囲の炎症細胞浸潤	シュワン細胞の増殖 や急性脱髓でみら れるようなマクロ ファージの浸潤はな い	Sandbrink 2001 <sup>12)</sup>
20	73F	ウェゲナー肉芽腫	PR3-ANCA 100倍, 血沈 77mm/hr, Cr 1.5 mg/dL, CRP 30 mg/dL	Median	+	-	+	腎・筋生検で肉芽 腫性の壊死性血管 炎	記載なし	Rechdi 2009 <sup>13)</sup>
21	61F	好酸球性多発血管 炎性肉芽腫症	気管支喘息, 好酸球 66%	Median Ulnar	-	+	-	記載なし		黒川 2016 <sup>14)</sup>
22	50F	好酸球性多発血管 炎性肉芽腫症	気管支喘息, アレルギー性鼻炎, WBC 28.3×10 <sup>3</sup> /μL, 好酸球 17858/μL (63.1%), IgE 450.7 IU/mL, MPO-ANCA 162 U/ml	Ulnar	-	+	-	記載なし		長谷 2016 <sup>15)</sup>
23	37F	好酸球性多発血管 炎性肉芽腫症	WBC 24.5×10 <sup>3</sup> /μL, 好酸球 18,375/μL, IgE 267.2 IU/mL	Peroneal Tibial				記載なし		
24	60F	好酸球性多発血管 炎性肉芽腫症	WBC 17.1×10 <sup>3</sup> /μL, 好酸球 8,960/μL, IgE 530.1 IU/mL	Ulnar				記載なし		
本例	35M	非全身性血管炎性 ニューロパチー	自己抗体陰性, 皮疹なし	Tibial	-	-	+	神経上膜内の血管 に壊死性血管炎	有髓線維高度脱落, thin myelin, 軸索再 生像	

その組織学的な裏付けは十分ではなかった。

本例の電子顕微鏡による観察では, Bungner 帯の形成を含めた軸索再生が多く認められるも

の, 髓鞘を有する有髓線維は非常に少なく, 髓鞘再生に乏しい軸索再生像と考えられた。脱髓は認められなかった。神経線維が再生する過

程で、軸索再生像の程度に比して髄鞘再生が著しく乏しいという、これまで報告されていなかった微細構造上の特徴が認められた。この組織学的所見から、神経伝導検査における伝導速度の遅延、CMAP潜時の延長、さらに再髄鞘化の程度によってCMAPの出現の速さにもばらつきが生じるため、時間的分散が出現した、と説明ができる。すなわち、血管炎性ニューロパチーにおける時間的分散の出現機序について、電子顕微鏡観察によりその組織学的な裏付けが得られた初めての症例と捉えられる。

神経伝導検査で、伝導ブロック、偽伝導ブロック、時間的分散といった脱髄性ニューロパチーを示唆する所見を認めても、血管炎性ニューロパチーの可能性も念頭に置いて適切な診断と治療選択をする必要がある。

## 引用文献

- 1) 木村淳: 末梢神経脱髄疾患の電気生理診断と治療。日本内科学会雑誌。1996; 85: 73-76. doi: 10.2169/naika.85.389.
- 2) Michael P. Collins, P. James B. Dyck, Gary S. Gronseth *et al.*: Peripheral Nerve Society Guideline on the classification, diagnosis, investigation, and immunosuppressive therapy of non-systemic vasculitic neuropathy: executive summary Journal of the Peripheral Nervous System. 2010; 15: 176-184. doi: 10.1111/j.1529-8027.2010.00281.x.
- 3) Gledhill, R.F. and Inshasi, J: Conduction block in vasculitic neuropathy. Neurology. 1992; 42: 699. doi: 10.1212/wnl.42.3.699.
- 4) David A. Katu, Richard I. Malamut, Daniel J. Frey, Gareth J. Parry: Conduction block as a early injury in ischemic monomelic neuropathy. Neurology. 1993; 43: 1126-1130. doi: 10.1212/wnl.43.6.1126.
- 5) Magistris, M. R., Kohler, A. and Estade, M: Conduction block in vasculitic neuropathy. Eur neurol. 1994; 34: 283-285. doi: 10.1159/000117057.
- 6) 本田真也, 竹下幸男, 古賀道明, 佐藤亮太, 尾本雅俊, 神田隆: 伝導ブロックを呈したANCA陰性好酸球性多発血管炎性肉芽腫症の74歳女性例。臨床神経。2021; 61: 613-617. doi: 10.5692/clinicalneuro.001564.
- 7) Angele Ropert MD, Stephane Metral: Conduction block in neuropathies with necrotizing vasculitis. Muscle Nerve. 1990; 13: 102-105. doi: 10.1002/mus.880130203.
- 8) Jamieson PW, Guiliani MJ, Martinez AJ: Necrotizing angiopathy presenting with multifocal conduction block. Neurology. 1991; 41: 442. doi: 10.1212/wnl.41.3.442.
- 9) 長谷川修, 飯野光治, 栗田竜子, 松本俊介, 森泉: 血管炎性ニューロパチーにおける運動神経伝導検査の所見の経過。末梢神経。1998; 9: 109-113.
- 10) Mohamed A, Davies L, Pollard JD: Conduction block in vasculitic neuropathy. Muscle Nerve. 1998; 21: 1084-1088. doi: 10.1002/(sici)1097-4598(199808)21:8<1084::aid-mus17>3.0.co;2-u.
- 11) Leo McCluskey, Daniel Feinberg, Charles Cantor, Shawn Bird: "Pseudo-Conduction block" in vasculitic neuropathy. Muscle Nerve. 1999; 22: 1361-1366. doi: 10.1002/(sici)1097-4598(199910)22:10<1361::aid-mus4>3.0.co;2-l.
- 12) F Sandbrink, A D Killion, M K Floeter: "Pseudo-Conduction block" in a patient with vasculitic neuropathy. Electromyogr Clin Neurophysiol. 2001; 41: 195-202.
- 13) Rechidi Ahdar, Marc Michel, Danusa O. Neves, Chantal Andre, Jean-Pascal Lefaucheur: Persistent multifocal pseudo-Conduction block in vasculitic neuropathy without antiganglioside antibodies. Muscle Nerve. 2009; 40: 290-293. doi: 10.1002/mus.21337.
- 14) 黒川勝己, 園尾雅弘: 血管炎性末梢神経障害の電気生理。BRAIN and NERVE. 2016; 68: 213-221.
- 15) 長谷健司, 村中美幸, 練合里江子, 油川陽子, 舟木技斗, 星直樹, 木村隆: 当院における好酸球性多発血管炎性肉芽腫症患者の偽伝導ブロックについての検討。旭川医療センター医学雑誌 (2188-9899)。2017; 3: 20-25.
- 16) Dyck PJ, Benstead TJ, Conn DL: Nonsystemic vascular neuropathy. Brain. 1987; 110: 843-854. doi: 10.1093/brain/110.4.843.
- 17) 竹下幸男, 神田隆: 血管炎ニューロパチーの診断と治療。Spinal surgery. 2020; 34: 20-24.
- 18) 大矢寧: 血管炎に伴う末梢神経障害。BRAIN and NERVE. 2016; 65: 1299-1309.
- 19) 神田隆: 血管炎ニューロパチーの新しい分類と診断・治療。臨床神経。2014; 54: 1050-1052.
- 20) 小池春樹: 血管炎性ニューロパチー。Peripheral Nerve. 2017; 28:240-243.

〈Case Report〉

## Temporal dispersion in vasculitic neuropathy: its microscopic ultrastructural findings

Shunichi SHIRAKAWA<sup>1)</sup>, Yutaka OSAWA<sup>1)</sup>, Katsumi KUROKAWA<sup>2)</sup>,  
Hirotake NISHIMURA<sup>3)</sup>, Yumiko KUTOKU<sup>1)</sup>, Shoji HENMI<sup>1)</sup>,  
Tatsufumi MURAKAMI<sup>1)</sup>, Masahito MIHARA<sup>1)</sup>, Yoshihide SUNADA<sup>1)</sup>

1) Department of Neurology Kawasaki Medical School

2) Department of Neurology Kawasaki Medical School General medical center

3) Department of Pathology Kawasaki Medical School

**ABSTRACT** A previously healthy 35-year-old man developed abnormal sensation in the right sural and medial plantar nerve territory 2 years ago. The sensory impairment gradually spread to the left sural and medial plantar nerve regions, then bilateral ulnar nerve regions. Nerve conduction study showed temporal dispersion in the left tibial nerve. Sural nerve biopsy revealed necrotizing vasculitis with fibrinoid necrosis in the epineurium. Toluidine blue staining of Epon-embedded tissue showed significant loss of myelinated nerve fibers without demyelination, even in the teased nerve fiber preparations. Electron microscopy showed immature regenerated nerve fibers with thin myelin sheaths. Even including 24 reported cases of vasculitic neuropathy with either conduction block, pseudo-conduction block, or temporal dispersion, this is the first case examined by electron microscopy. Herein, we discuss the ultrastructural background of “temporal dispersion” in vasculitic neuropathy.

(Accepted on October 17, 2022)

Key words : Vasculitic neuropathy, Temporal dispersion

---

Corresponding author

Shunichi Shirakawa

Department of Neurology, Kawasaki Medical School,  
577 Matsushima, Kurashiki, 701-0192, Japan

Phone : 81 86 462 1111

Fax : 81 86 462 1199

E-mail : awakarihs@med.kawasaki-m.ac.jp