

© ДРУЖИНИНА Е.С., ДЕДАЕВ С.И., 2021

БИЛАТЕРАЛЬНАЯ ФОРМА НЕВРАЛГИЧЕСКОЙ АМИОТРОФИИ

Дружинина Е.С.¹, Дедаев С.И.²

¹Федеральное государственное автономное образовательное учреждение высшего образования «Российский национальный исследовательский медицинский университет им. Н.И. Пирогова» Минздрава России, 117997, Москва, Россия

²Государственное бюджетное учреждение здравоохранения «Научно-практический психоневрологический центр им. З.П. Соловьева» Департамента здравоохранения г. Москвы, Москва, Россия

Резюме. Невралгическая амиотрофия — острая болевая воспалительная невропатия с вовлечением, как правило, стволов плечевого сплетения с одной стороны. Представлено клиническое описание билатеральной формы невральной амиотрофии с последовательным вовлечением плечевого сплетения с двух сторон у мужчины 62 лет и купированием невропатического болевого синдрома в ответ на введение больших доз глюкокортикостероидов.

Ключевые слова: невральной амиотрофия; острая невропатия; невропатическая боль; МРТ плечевого сплетения.

Для цитирования: Дружинина Е.С., Дедаев С.И. Билатеральная форма невральной амиотрофии. *Российский неврологический журнал*. 2021;26(1):45–49. DOI 10.30629/2658-7947-2021-26-1-45-49

Для корреспонденции: Дружинина Е.С., e-mail: naumovaes@gmail.com

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Информация об авторах

Дружинина Е.С., <https://orcid.org/0000-0002-1004-992X>; e-mail: naumovaes@gmail.com

Дедаев С.И., <https://orcid.org/0000-0003-2937-528X>; e-mail: medikartdir@gmail.com

BILATERAL FORM OF NEURALGIC AMYOTROPHY

Druzhinina E.S.¹, Dedaev S.I.²

¹Department of Neurology, Neurosurgery and Medical Genetics Pediatric Faculty “Russian National Research Medical University n.a. N.I. Pirogov”, Department of Nervous System Diseases with Course of Medical Genetics and Pediatric Neurology, 117997, Moscow, Russia

²Moscow Research and Clinical Center for Neuropsychiatry of the Healthcare Department, Moscow, Russia

Abstract. Neuralgic amyotrophy is an acute painful inflammatory neuropathy involving, as a rule, the trunks of the brachial plexus in one side. A clinical case of a bilateral form of neuralgic amyotrophy is presented with successively involvement of the brachial plexus on both sides in a 62-year-old man and relief of neuropathic pain in response to high doses of glucocorticosteroids.

Key words: neuralgic amyotrophy, acute neuropathy, neuropathic pain, MRI brachial plexus.

For citation: Druzhinina E.S., Dedaev S.I. Bilateral form of neuralgic amyotrophy. *Russian Neurological Journal (Rossijskij Nevrologicheskij Zhurnal)*. 2021;26(1):45–49. (Russian). DOI 10.30629/2658-7947-2021-26-1-45-49

For correspondence: Druzhinina E.S., e-mail: naumovaes@gmail.com

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Acknowledgements. The study had no sponsorship.

Information about authors

Druzhinina E.S., <https://orcid.org/0000-0002-1004-992X>; e-mail: naumovaes@gmail.com

Dedaev S.I., <https://orcid.org/0000-0003-2937-528X>; e-mail: medikartdir@gmail.com

Received 21.11.2020

Accepted 15.12.2020

Введение

Невральной амиотрофия (НА) в свете современного представления о болезни является острой болевой невропатией, как правило, с вовлечением нервных стволов плечевого сплетения с одной стороны. В течение болезни выделяют три фазы — фазу боли, фазу амиотрофий и нарушения чувствительности и период восстановления [1, 2]. Билатеральные формы как классической НА, так и дистальной фор-

мы встречаются редко — в 10% случаев, что затрудняет постановку диагноза [1].

Представляем наше клиническое наблюдение

Пациент Т., 62 года, у которого развилась острая боль в правом плече в ночное время, на следующий день присоединилась боль в левом плече. Болевой синдром развился без провоцирующих факторов в анамнезе и носил невропатический характер интенсивностью до 10 баллов по визуально-аналого-

вой шкале (ВАШ), не купировался приемом нестероидных анальгетиков и нарушал сон. При первичном обращении к неврологу проведена МРТ шейного отдела позвоночника, не выявившая невралгической компрессии. Назначенный прегабалин в дозе 300 мг в сутки для коррекции боли, не уменьшил ее. Больной осмотрен на 10-й день от начала заболевания.

В неврологическом статусе обращало на себя внимание вынужденное положение обеих рук, согнутых в локтевых суставах, что затрудняло полноценный осмотр. Пассивные и активные движения в руках были невозможны из-за болевого синдрома. Карпо-радиальный и рефлекс с сухожилий двуглавых и трехглавых мышц вызывались, были симметричными. Пациент не предъявлял жалобы на нарушение чувствительности и слабость в мышцах рук. Однако уже на 10-й день болевого синдрома хорошо была заметна гипотрофия мышц, иннервируемых правым плечевым сплетением (рис. 1).

Проведена электромиография (ЭМГ), выявившая признаки двустороннего поражения нервных стволов плечевого сплетения: в надостной, подостной, дельтовидной, двуглавой и трехглавой мышцах плеча с обеих сторон регистрировалась бурная спонтанная активность в виде положительных острых волн и потенциалов фибрилляций. Единичные потенциалы двигательных единиц (ПДЕ) рекрутировались только в двуглавой и трехглавой мышцах. В общем разгибателе пальцев и 1-й межкостной мышце кисти параметры ПДЕ не были изменены, спонтанная активность не регистрировалась. Полученные данные ЭМГ указывали на текущий двусторонний денервационный процесс в зоне иннервации С5, С6, С7 спинномозговых нервов. При УЗИ плечевого сплетения не диагностировано увеличения нервных стволов. На МРТ плечевого сплетения с контрастным усилением гадолинием выявлены признаки плексита с обеих сторон в виде усиления МР-сигнала на T2-взвешенном изображении, а так-

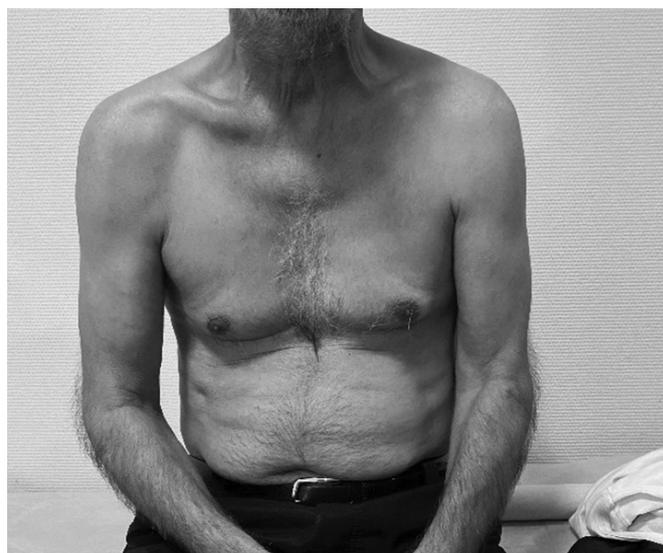


Рис. 1. Пациент Т., 62 года. 10-й день болезни. Гипотрофия грудной мышцы справа

Fig. 1. Patient T. 62 y.o. 10th day of illness. Hypotrophy of the pectoral muscle on the right side

же накопление контраста стволами плечевого сплетения также с обеих сторон (рис. 2).

Рутинное лабораторное обследование, включающее общий анализ, биохимическое исследование крови с определением показателей, характеризующих функцию печени, почек, неспецифические маркеры воспаления, ВИЧ-инфекции, гепатиты В и С, отклонений от нормы не выявили. Также не было выявлено факторов (профессиональных вредностей, соматической патологии, травм, предшествующей вакцинации, перенесенных инфекций и других), потенциально являющихся триггерами развития НА.

На основании анамнеза (развитие острой невропатической боли в области плеча), наличия аксонального повреждения по данным ЭМГ, изменения



Рис. 2. Пациент Т., 62 года. МРТ плечевого сплетения в T2-режиме. Усиление МР-сигнала от нервных стволов с обеих сторон

Fig. 2. Patient T. 62 y.o. MRI T2 brachial plexus. Increased MR signal intensity of the plexus bilaterally

Таблица 1

Динамика мышечной силы (MRC) у пациента Т., 62 года, за период наблюдения 7 мес.

| Показатель | | Время | | На 10-й день после дебюта заболевания | | Через 20 дней после дебюта (проведена терапия метилпреднизолоном) | | Через 7 мес. после дебюта заболевания | |
|-----------------------------------|-----------------------------|----------------------------|---------------|---------------------------------------|-------|---|-------|---------------------------------------|-------|
| | | Боль (в баллах по ВАШ) VAS | | 8–10 | | 0 | | 0 | |
| Сила мышц (в баллах по шкале MRC) | Мышцы | справа | слева | справа | слева | справа | слева | справа | слева |
| | <i>m. supraspinatus</i> | Не измерялась | Не измерялась | 0 | 1 | 0 | 1 | 0 | 1 |
| | <i>m. deltoideus</i> | | | 0 | 1 | 1 | 1 | 1 | 1 |
| | <i>m. biceps brachii</i> | | | 3 | 3 | 5 | 5 | 5 | 5 |
| | <i>m. triceps brachii</i> | | | 2 | 3 | 5 | 5 | 5 | 5 |
| | <i>m. pectoralis major</i> | | | 2 | 3 | 5 | 5 | 5 | 5 |
| | <i>m. serratus anterior</i> | | | 2 | 3 | 5 | 5 | 5 | 5 |

Table 1

Dynamics of muscle strength (MRC) in a 62-year-old patient over a 7-month follow-up period

| Value | | Time | | 10 days after the onset of the disease | | 20 days after the onset of the disease (the treatment with methylprednisolone was carried out) | | 7 months after the onset of the disease | |
|--|-----------------------------|------------------|--------------|--|------|--|------|---|------|
| | | Pain (score VAS) | | 8–10 | | 0 | | 0 | |
| Medical Research Council Scale for Muscle Strength | muscles | right | left | right | left | right | left | right | left |
| | <i>m. supraspinatus</i> | not measured | not measured | 0 | 1 | 0 | 1 | 0 | 1 |
| | <i>m. deltoideus</i> | | | 0 | 1 | 1 | 1 | 1 | 1 |
| | <i>m. biceps brachii</i> | | | 3 | 3 | 5 | 5 | 5 | 5 |
| | <i>m. triceps brachii</i> | | | 2 | 3 | 5 | 5 | 5 | 5 |
| | <i>m. pectoralis major</i> | | | 2 | 3 | 5 | 5 | 5 | 5 |
| | <i>m. serratus anterior</i> | | | 2 | 3 | 5 | 5 | 5 | 5 |

нервных стволов обоих плечевых сплетений по результатам МРТ, верифицирован диагноз — «невралгическая амиотрофия, фаза боли».

Пациенту назначена пульс-терапия метилпреднизолоном в суммарной курсовой дозе 5 г. После первой инфузии (1 г) болевой синдром был купирован, увеличился объем активных движений — пациент смог сгибать и разгибать руки в локтевых суставах, однако стал предъявлять жалобы на мышечную слабость в руках, более выраженную справа. При осмотре в динамике на 20-й день от начала боли в неврологическом статусе выявлялись гипотрофии и мышечная слабость в проксимальных мышцах рук, более выраженная справа — надостная справа/слева — 0/1 балл по шкале MRC (Medical Research Council Scale for Muscle Strength), дельтовидная — 0/1 балл, двуглавая мышца — 2/3 балла, трехглавая — 3/3 балла; в больших грудных и передних зубчатых мышцах — 2–3 балла, сила трапецевидной мышцы, мышц предплечья и кисти с обеих сторон составляла 5 баллов (рис. 3).

Также пациент стал предъявлять жалобы и на онемение в руках. Распределение нарушения болевой чувствительности соответствовало зонам иннервации плечевых сплетений.

Пациент осмотрен через 7 мес. В динамике отмечалось восстановление мышечной силы в двуглавых, трехглавых мышцах плеча, передних зубчатых и больших грудных с обеих сторон, однако в надостных и дельтовидных мышцах сохранялся грубый парез (табл. 1). Чувствительные нарушения регрессировали.

Обсуждение

Особенностью представленного наблюдения является двустороннее поражение плечевого сплетения, тогда как в подавляющем большинстве случаев НА страдает одна сторона плечевого пояса [3, 4]. Кроме того, при билатеральном поражении болевой синдром возникает одновременно с обеих сторон [3], тогда как у нашего больного боль в другом плече появилась с интервалом в сутки. Двустороннее поражение плечевого сплетения при НА требует исключения таких состояний, как гепатит E, ВИЧ-инфекция, Лайм-боррелиоз [4–6]. Однако развитие НА у пациента в зимний период позволило не проводить обследование крови и ликвора на наличие антител к боррелиям, с учетом того, что последнее размножение иксодовых клещей наблюдается в конце августа — начале сентября, когда возможно получить укус клеща, и 2-я фаза Лайм-боррелиоза (т.е. нейроборрелиоз) развивается через 3 месяца после инфицирования, а также нормальные показатели стандартного биохимического анализа крови, включавшего печеночные ферменты и отрицательные результаты на ВИЧ давностью менее 6 месяцев, послужили основанием для исключения этих потенциальных триггеров.

Выявление изменений на МРТ нервных стволов, по данным литературы, встречается не более, чем в 6% наблюдений [1], однако у нашего пациента обнаружено двустороннее поражение плечевого сплетения. Частота встречаемости МРТ-изменений при НА требует дальнейших исследований с учетом того, что сегодня НА рассматривается как заболева-



Рис. 3. Пациент Т., 62 года. Фаза амиотрофий и чувствительных нарушений НА. Атрофии мышц плечевого пояса с обеих сторон
Fig. 3. Patient T. 62 y.o. Phase of weakness, amyotrophy and sensory complaints of NA. Atrophy of the shoulder girdle muscles from 2 sides

ние с генерализованным вовлечением периферических нервов [7–10].

Неэффективность стандартной медикаментозной терапии невропатического болевого синдрома при НА встречается редко и в этом случае купируется на фоне ведения иммуномодулирующей терапии [2, 11, 12], что и было продемонстрировано у нашего пациента, хотя не были предприняты попытки повышения дозы прегабалина.

Неполное восстановление двигательной функции у пациента Т. требует дальнейшего обследования с целью поиска фокальной констрикции нервов (ФКПН) и хирургического лечения. Показано, что у пациентов с отсутствием спонтанного восстановления мышечной силы обнаруживаются ФКПН в соответствующих нервах, что является показанием для оперативного лечения [13–15].

Заключение

Билатеральная форма является редким вариантом НА, при которой болевой синдром может развиваться последовательно с вовлечением обеих сторон плечевого пояса.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование проведено без спонсорской поддержки.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. van Alfen N., van Engelen B.G. The clinical spectrum of neuralgic amyotrophy in 246 cases. *Brain*. 2006;129(Pt.2):438–50. doi: 10.1093/brain/awh722. Epub 2005 Dec 21. PMID: 16371410
2. Seror P. Neuralgic amyotrophy. An update. *Joint Bone Spine*. 2017;84(2):153–158. doi: 10.1016/j.jbspin.2016.03.005. Epub 2016 Jun 2. Review. PubMed PMID: 27263426.
3. Ferrante M.A., Wilbourn A.J. Lesion distribution among 281 patients with sporadic neuralgic amyotrophy. *Muscle Nerve*. 2017;55(6):858–861. doi: 10.1002/mus.25422. Epub 2017 Feb 3. PMID: 27680713.
4. Arányi Z., Szpisjak L., Szőke K. Multiphasic presentation of neuralgic amyotrophy associated with hepatitis E virus infection. *Muscle Nerve*. 2020;61(1):108–110. doi: 10.1002/mus.26722. Epub 2019 Nov 6. PMID: 31573093.
5. Zhang S., Zhang L.Q., Wright M., Gater D.R. Challenging Diagnosis and Inpatient Rehabilitation of Acute Bilateral Neuralgic Amyotrophy Possibly Attributed to Lyme Disease: A Case Report. *PMR*. 2018;10(7):770–774. doi:10.1016/j.pmrj.2017.11.018
6. Dartevell A., Colombe B., Bosseray A., Larrat S., Sarrot-Reynaud F., Belbezier A. et al. Hepatitis E and neuralgic amyotrophy: Five cases and review of literature. *J. Clin. Virol*. 2015;69:156–64. doi: 10.1016/j.jcv.2015.06.091. Epub 2015 Jun 23. PMID: 26209399.
7. Abraham A., Izenberg A., Dodig D., Bril V., Breiner A.. Peripheral Nerve Ultrasound Imaging Shows Enlargement of Peripheral Nerves Outside the Brachial Plexus in Neuralgic Amyotrophy. *J. Clin. Neurophysiol*. 2016;33(5):e31–e33. doi: 10.1097/WNP.0000000000000304. PMID: 27749462. doi:10.1016/j.jcv.2015.06.091
8. van Rosmalen M., Lieba-Samal D., Pillen S., van Alfen N. Ultrasound of peripheral nerves in neuralgic amyotrophy. *Muscle Nerve*. 2019;59(1):55–59. doi:10.1002/mus.26322
9. Lieba-Samal D., Jengojan S., Kasprian G., Wöber C., Bodner G. Neuroimaging of classic neuralgic amyotrophy. *Muscle Nerve*. 2016;54(6):1079–1085. doi: 10.1002/mus.25147. Epub 2016 Sep 23. PMID: 27074430.
10. Hakopian D.K., Andary M. Comment on neuralgic amyotrophy: An update on diagnosis, pathophysiology, and treatment. *Muscle Nerve*. 2017;55(3):447. doi: 10.1002/mus.25454. Epub 2016 Nov 16. PMID: 27783420
11. Naito K.S., Fukushima K., Suzuki S., Kuwahara M., Morita H., Kusunoki S. et al. Intravenous immunoglobulin (IVIg) with methylprednisolone pulse therapy for motor impairment of neuralgic amyotrophy: clinical observations in 10 cases. *Intern. Med*. 2012;51(12):1493–500. doi: 10.2169/internalmedicine.51.7049. Epub 2012 Jun 15. PMID: 22728480
12. Johnson N.E., Petraglia A.L., Huang J.H., Logigian E.L. Rapid resolution of severe neuralgic amyotrophy after treatment with

- corticosteroids and intravenous immunoglobulin. *Muscle Nerve*. 2011;44(2):304–5. doi: 10.1002/mus.22100. Epub 2011 Jun 29. PMID: 21717467.
13. Sneag D.B., Saltzman E.B., Meister D.W., Feinberg J.H., Lee S.K., Wolfe S.W. MRI bullseye sign: An indicator of peripheral nerve constriction in parsonage-turner syndrome. *Muscle Nerve*. 2017;56(1):99–106. doi: 10.1002/mus.25480. Epub 2017 Mar 2. PMID: 27864992.
 14. Sneag D.B., Rancy S.K., Wolfe S.W., Lee S.C., Kalia V., Lee S.K. et al. Brachial plexitis or neuritis? MRI features of lesion distribution in Parsonage-Turner syndrome. *Muscle Nerve*. 2018;58(3):359–366. doi: 10.1002/mus.26108. Epub 2018 Mar 25. PMID: 29461642.
 15. Gstoettner C., Mayer J.A., Rassam S., Hruby L.A., Salminger S., Sturma A. et al. Neuralgic amyotrophy: a paradigm shift in diagnosis and treatment. *J. Neurol. Neurosurg Psychiatry*. 2020;91(8):879–888. doi: 10.1136/jnnp-2020-323164. Epub 2020 Jun 2. PMID: 32487526.

Поступила 21.11.2020
Принята к печати 25.12.2020
