



12-31-2011

Dysphagia in Critical Illness Polyneuropathy and Myopathy: A casereport

Hung-Chou Chen

Yen-Hsia Hsu

Shin-Ching Chen

Tyng-Guey Wang

Sung-Hui Tseng

See next page for additional authors

Follow this and additional works at: <https://rps.researchcommons.org/journal>



Part of the [Rehabilitation and Therapy Commons](#)

Recommended Citation

Chen, Hung-Chou; Hsu, Yen-Hsia; Chen, Shin-Ching; Wang, Tyng-Guey; Tseng, Sung-Hui; and Kang, Jiunn-Horng (2011) "Dysphagia in Critical Illness Polyneuropathy and Myopathy: A casereport," *Rehabilitation Practice and Science*: Vol. 39: Iss. 2, Article 7.

DOI: [https://doi.org/10.6315/2011.39\(2\)07](https://doi.org/10.6315/2011.39(2)07)

Available at: <https://rps.researchcommons.org/journal/vol39/iss2/7>

This Case Report is brought to you for free and open access by Rehabilitation Practice and Science. It has been accepted for inclusion in Rehabilitation Practice and Science by an authorized editor of Rehabilitation Practice and Science. For more information, please contact twpmrscore@gmail.com.

Dysphagia in Critical Illness Polyneuropathy and Myopathy: A casereport

Authors

Hung-Chou Chen, Yen-Hsia Hsu, Shin-Ching Chen, Tyng-Guey Wang, Sung-Hui Tseng, and Jiunn-Horng Kang

危症後多發性神經肌肉病變之吞嚥困難：病例報告

陳弘洲 許燕霞 陳適卿 王亭貴¹ 曾頌惠 康峻宏

臺北醫學大學附設醫院復健科 台灣大學附設醫院復健部¹

危症後多發性神經肌肉病變是危症後病人常見的併發症。然而，目前並沒有此類病人發生持續吞嚥困難的相關文獻。此外，對於糖尿病病患發生嚴重吞嚥困難的情況也是罕見的。我們報告了一位女性糖尿病病患個案，由於嚴重的肺炎併發呼吸衰竭後產生廣泛性的肌肉無力的現象。核磁共振掃描排除了腦部病灶的可能性。而患者的神經傳導及肌電圖檢查則證實了多發性神經病變及肌肉病變。儘管經過復健訓練後個案的四肢肌力恢復到接近正常，我們發現患者仍舊持續有吞嚥障礙。而螢光錄影吞嚥檢查也顯示出嚴重的口咽部吞嚥困難。危症後的病人有可能高達 70%至 80%的機會罹患危症後多發性神經肌肉病變，然而此病症在近年來才逐漸的被重視，目前對其致病原因以至於治療的方法仍有諸多未明之處。因此，未來仍迫切需要有更多相關的研究。（台灣復健醫誌 2011；39(2)：117 - 122）

關鍵詞：危症後多發性神經肌肉病變(critical illness polyneuropathy and myopathy)，吞嚥困難(dysphagia)，糖尿病(diabetes mellitus)

前言

危症後多發性神經肌肉病變(critical illness polyneuropathy and myopathy)為一常見之危症後併發症，此病症往往發生於敗血症或多重器官衰竭而需要在加護病房使用呼吸器照護之病患。^[1]也有報告指出危症後多發性神經肌肉病變與病患在加護病房中接受了一些皮質類固醇或神經肌肉阻斷劑(neuromuscular blocking agents)等藥物有相關。^[2]病患最主要的症狀為全身性的肌力喪失，神經傳導檢查(nerve conduction study)及肌電圖學檢查(electromyography)是最重要的診斷依據。病患雖可單獨出現神經病變或肌肉病變，卻有高達 80%的病患同時出現神經病變及肌肉病變。^[1]

本文報告一位危症後多發性神經肌肉病變之個案，患者除了有四肢無力之症狀外，亦出現了嚴重吞嚥困難之情形。儘管經過復健訓練後個案的四肢肌力恢復到接近正常，但仍因嚴重之吞嚥困難致使無法脫離鼻胃管。然而，關於危症後多發性神經肌肉病變的

文獻報告中並未曾提出有此類病患產生吞嚥機能障礙。因此將此案例提出以供作為臨床上之參考。

病例報告

個案為一名 58 歲女性，過去有五年糖尿病病史且規則使用口服降血糖藥控制，除此之外過去並沒有任何神經肌肉之相關症狀。個案於赴日本旅遊期間因上呼吸道感染併發肺炎住院接受抗生素治療，而後因經濟因素自行出院返國改入國內某醫學中心接受住院治療。入院之時仍能自行行走及呼吸無礙，然而住院期間卻發展出右肺膿瘍合併呼吸衰竭，因而需轉入加護病房並接受氣管插管及呼吸器治療。氣管插管五週後因拔管困難接受了氣管造口手術(tracheostomy)。個案經過治療後成功的脫離呼吸器但卻出現全身無力及感覺低下、吞嚥困難等症狀，因此轉入本院復健科接受復健訓練。

個案入院時身上帶有氣切管(tracheostomy tube)、鼻胃管(nasogastric tube)以及導尿管(Foley tube)。理學

投稿日期：99 年 7 月 26 日 修改日期：99 年 10 月 29 日 接受日期：99 年 11 月 17 日

通訊作者：康峻宏醫師，臺北醫學大學附設醫院復健科，台北市 110 信義區吳興街 252 號

電話：(02) 27372181 轉 1236 E-mail：jkh@tmu.edu.tw

檢查顯示其認知功能正常，其嗅覺、視覺、及眼球活動能力正常，但有顏面感覺低下、雙側顏面肌肉無力及雙側聽覺稍差情況，嘗試吞嚥開水時則有明顯吞嚥反射延遲及吞嚥中噎咳(during swallowing choking)。其四肢出現肌肉萎縮現象，四肢肌力約為四分並伴有明顯的全身感覺低下。個案可在扶持下做短距離行走但耐力及步態穩定度相當不足。入院時的巴氏量表(Barthel's Index)分數為 40 分，實驗室檢查顯示肌酸酐(creatinine)僅 0.3mg/dl，醣化血色素(HbA1c)則為 7.8%。個案因氣切管留置致使難以發聲，但能藉助白板及白板筆與人溝通。入院時的治療計畫為詳細檢查其可能病因、移除其所有管路、提升其全身肌力及日常生活功能。

個案於入院時安排的腦部核磁共振檢查(magnetic resonance imaging)顯示出輕微之腦萎縮而無明顯之腦部病灶。神經傳導檢查呈現全身性軸突退化及去髓鞘混合型多發性感覺及運動神經病變(diffuse sensorimotor polyneuropathy, mixed with axonal degeneration and demyelinating change)。肌電圖學檢查則在全身數塊肌肉呈現運動單位動作電位(motor unit action potential)的波長(duration)及振幅(amplitude)明顯減小合併有提早徵召現象(early recruitment)的典型肌肉病變表現(myopathic pattern)，因此診斷為危症後多發性神經肌肉病變。顏面神經傳導檢查及瞬眼反射檢查(blink reflex)則呈現雙側的顏面神經及三叉神經病變。聽力檢查報告亦呈現出輕度至中度的雙側聽力缺損。

個案於住院期間成功的脫離導尿管，雖然其自解尿後仍有約 150ml 之餘尿，但後續追蹤之尿液檢驗並未發現有泌尿道感染之情形。然而，住院中雖曾嘗試移除氣切管及鼻胃管，但卻在移除九天後出現吸入性肺炎(aspiration pneumonia)、二氧化碳滯留(CO₂ retention)、及呼吸衰竭之情形。個案因而再度接受氣

管插管及鼻胃管插管，並於氣管插管十一天後再度接受氣管造口手術。個案在經過抗生素治療後肺炎狀況有所改善並成功脫離呼吸器，但在爾後的住院期間仍保持氣切管及鼻胃管的留置。個案在病況穩定之後持續接受復健訓練，其訓練重點主要放在全身肌力之提升、呼吸及排痰能力的訓練、耐力的增加、日常生活功能訓練、以及吞嚥能力的訓練。經過訓練後個案之肌力、耐力、以及日常生活功能都略有提升，其巴氏量表(Barthel's Index)分數提升至 60 分。此外，個案於住院期間使用口服降血糖藥物可使平均飯前血糖值控制在約 110~120mg/dL。

個案在本院接受復健治療後因氣切管及鼻胃管難以移除等問題再度轉往國內某醫學中心接受住院治療。住院時的螢光錄影吞嚥檢查(videofluoroscopic swallowing study)顯示：整體的型態學表現正常(normal morphological appearance)，但無論是稀薄膳食(thin meal)測試或是濃稠膳食(thick meal)測試時都出現了嚴重的口腔滯留(oral stasis)及零碎吞嚥(piecemeal swallowing)的現象，而其口腔通過期(oral transit time)、咽部通過期(pharyngeal transit time)、及吞嚥觸發(swallowing trigger)亦都有明顯的延遲(圖 1, 2)。此外，在稀薄膳食測試時出現些微的吞嚥後噎咳(post swallowing choking)(圖 1)。而在濃稠膳食測試時則出現食物無法進入食道及無徵狀的吸入(silent aspiration)(圖 2)。故螢光錄影吞嚥檢查的結果為嚴重的口咽部吞嚥困難(oropharyngeal dysphagia)。爾後個案在經過復健治療後肌肉力量及生活功能持續有所改善，其肌肉力量進步至接近正常，耐力及步態穩定度都有所改善，巴氏量表分數由最初入院時的 40 分提升至最後出院時的 80 分。然而在吞嚥功能方面，吞嚥反射延遲及吞嚥中噎咳的情況並無明顯改善，致使其鼻胃管始終無法移除。

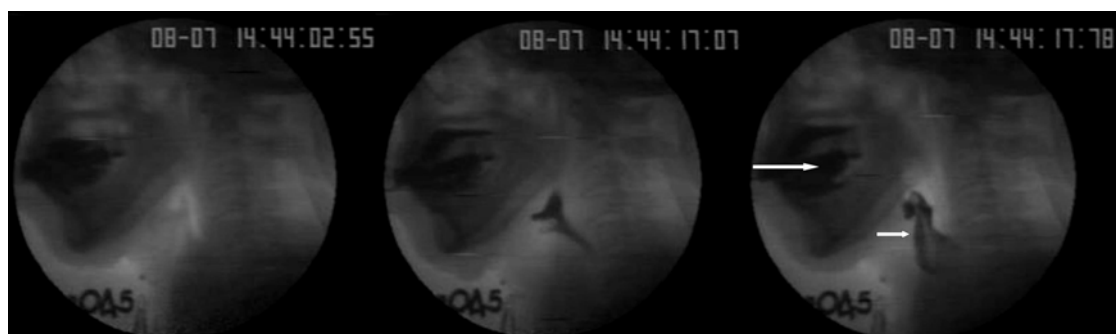


圖 1. 螢光錄影吞嚥檢查：稀薄膳食測試。可以見到黑色顯影食物大部分都滯留於口腔中(長箭號)，而且從開始吞嚥的 44 分 02 秒一直到 44 分 17 秒才開始有食物進入食道(短箭號)，明顯有吞嚥延遲的現象。

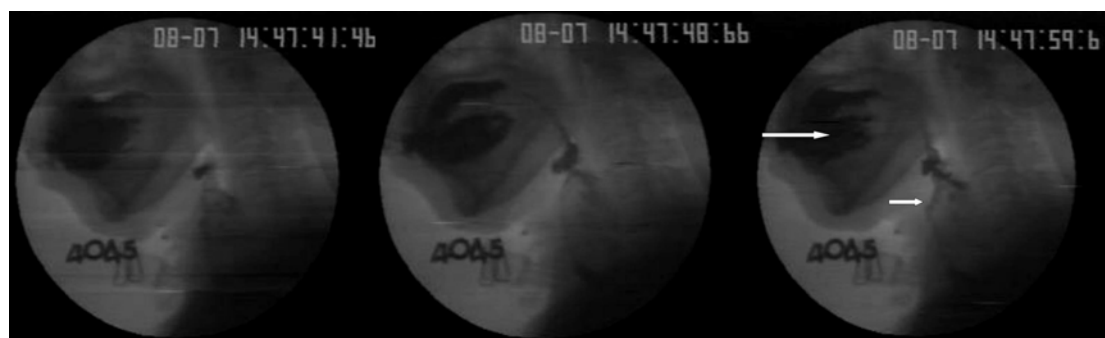


圖 2. 螢光錄影吞嚥檢查：濃厚膳食測試。除了可以見到黑色顯影食物大部分都滯留於口腔中(長箭號)及明顯有吞嚥延遲的現象之外，還可以見到食物進入到氣管及食物無法進入食道的現象(短箭號)。

討 論

吞嚥行為的產生主要由腦神經來調控，其中相關的感覺神經由第五對、第九對、及第十對腦神經所支配，運動神經則由第五對、第七對、第九對、第十對、及十二對腦神經所支配。^[3]本個案在螢光錄影吞嚥檢查時顯示出嚴重的口咽部吞嚥困難，也曾因此吞嚥困難被懷疑是否有併發腦部病變的可能性，然而其腦部核磁共振掃描只顯示出輕微的腦萎縮而看不到其他任何的局部病灶。因此造成其吞嚥困難最有可能原因便是來自於吞嚥相關的腦神經或其支配之肌肉群的病變。本個案在肺膿瘍併呼吸衰竭經加護病房照護後出現吞嚥困難及肢體無力，經神經傳導暨肌電圖學檢查診斷為危症後多發性神經肌肉病變，因此推論其口咽部吞嚥困難應為危症後多發性神經肌肉病變所導致。

危症後的病人有可能高達 70%至 80%的機會罹患危症後多發性神經肌肉病變，^[1]然而，根據 Zink 等人在 2009 年及 van Mook 等人在 2002 年提出的回顧性文章指出，危症後多發性神經肌肉病變的病患其腦神經縱使在神經電學檢查有可能出現異常但通常並不會有臨床症狀出現。因此將腦神經的相對不受侵犯視為危症後多發性神經肌肉病變的一個特色。^[1,4]至於吞嚥困難症狀在危症後多發性神經肌肉病變的相關文獻中並不曾被提及。危症後多發性神經肌肉病變發生的原因至今仍未定論，其造成神經病變的主因可能為因敗血症導致周邊微小循環(microcirculation)的改變，造成肌肉病變的主因則可能為敗血症導致的蛋白質異質化(catabolism)。^[1]然而，既然其影響為全身性，理論上腦神經及吞嚥相關肌肉之影響仍是可能發生的。根據過去的文獻，全身性的神經病變如 Guillain-Barré 症候群約有百分之五十的可能會有口咽部的影響；^[5]而全身性

的肌肉病變如多發性肌炎(polymyositis)亦可能影響到口咽部的肌肉造成吞嚥困難。^[6]無論如何本病例的臨床表現，在目前已知文獻中是相當罕見的情形。

此個案患有多年的糖尿病，糖尿病病患有很高的機會併發多發性神經病變。然而，單靠糖尿病引起的多發性神經病變並不足以解釋個案在肌電圖學檢查出現的典型肌肉病變表現。此外，糖尿病雖也可造成吞嚥困難，但大多症狀輕微，其發生之原因為自律神經病變造成食道活動異常，其表現應為食道部吞嚥困難，^[7,8]而非本個案的口咽部吞嚥困難。

文獻上可見糖尿病併發之神經病變於腦神經的影響多在第三對、第四對、及第六對等與眼球活動相關之神經；^[9]也有文獻指出患有糖尿病之病患較高的機會罹患貝爾氏麻痺(Bell's palsy)。^[10,11]本個案依其神經傳導檢查中之顏面神經檢查及瞬眼反射檢查顯示其有雙側顏面神經及三叉神經之神經病變，此與貝爾氏麻痺一般只影響到單側單一一條顏面神經的表現並不相符，且貝爾氏麻痺於吞嚥功能上通常也只有很輕微的影響。雖然也有文獻提到少數貝爾氏麻痺病患除了顏面神經外也有其他腦神經的影響，^[12]但嚴重的吞嚥困難在貝爾氏麻痺的相關文獻中並不曾被提及。

Zink 等人在 2009 年發表的回顧性文章亦提到，若懷疑為危症後多發性神經肌肉病變之個案出現腦神經病變的症狀時，要考慮其診斷為 Guillain-Barré 症候群的可能性。^[1]然而本個案除了神經傳導檢查呈現全身多發性感覺及運動神經病變之外，肌電圖學檢查亦呈現多發性肌肉病變表現，此檢查結果與 Guillain-Barré 症候群僅單純為神經病變並不相符。此外，就病史而言，Guillain-Barré 症候群通常在輕微感染或接受疫苗後一陣子產生症狀，與本個案於危症後產生症狀並不相符。^[13]

個案除了顏面神經檢查及瞬眼反射檢查顯示其有

雙側顏面神經及三叉神經之神經病變之外，住院期間的聽力檢查也顯示出了輕度至中度的雙側聽力缺損，再加上其嚴重的口咽部吞嚥困難症狀，足見其應有相當多對之腦神經病變。然而個案在視力及眼球活動上並無明顯之症狀或是理學檢查上之異常。至於其肌肉病變造成的影響，雖曾考慮於其吞嚥相關之肌肉進行肌電圖檢查，但因個案有氣切管而且還併有氣管造口局部的反覆感染，因此只施行了舌肌的肌電圖檢查，其結果亦顯示出舌肌有典型的肌肉病變表現。綜合以上，我們可以推論出該個案因危症後多發性神經肌肉病變造成的神經病變影響範圍包含了多對的腦神經，因而造成其嚴重之口咽部吞嚥困難。而其肌肉病變影響的範圍亦可能包含了與吞嚥相關之肌肉群而進一步惡化其吞嚥困難的情形。

本個案在第一次接受神經傳導檢查及肌電圖學檢查時距離發病已有三個月，因此應未記錄到病變的最差狀態，這也解釋了其肌電圖學檢查並沒發現有自發性電位活動(spontaneous activity)。而且個案患有多年糖尿病，原先就有可能存在一定程度的多發性神經病變，^[14]但此次發病前並未曾接受過神經傳導檢查。因此神經傳導檢查並無法完全觀察到危症後多發性神經病變影響的程度。然而在後續追蹤的神經傳導檢查，顯示個案約在發病後的前半年有較顯著的神經學進步而後進步轉為趨緩並且離正常仍有一段距離。這與文獻上提到危症後多發性神經肌肉病變的患者其症狀及神經傳導檢查可在發病後數週到數個月逐漸進步，但部分患者無法完全回復的情況相符合。^[15,16]然而，就臨床上的觀察，該個案在四肢肌肉力量及生活功能上隨著時間及復健治療有明顯之進步，個案的巴氏量表分數於入院後的半年間由 40 分進步到 80 分而後進步程度趨緩。但相較之下，吞嚥困難的情形卻一直持續而未有明顯之進步，這是否意味著在危症後多發性神經肌肉病變的患者一旦影響到吞嚥功能時回復會較為不易？需進一步收集相關個案更進一步釐清。

根據目前的文獻，在危症照護(critical care)期間嚴格的血糖控制可以有效降低危症後多發性神經肌肉病變的發生率。^[17,18]此外，危症照護期間過度的使用皮質類固醇或神經肌肉阻斷劑也被認為會增加罹患此病症的機率。^[2]然而，對於已經罹患此病症的病人至今仍未提出有效的治療方法。^[1]不過普遍認為及早接受復健治療會對病人有所幫助。^[1,19]至於在吞嚥困難的治療方面，目前在危症後多發性神經肌肉病變的患者並無相關的文獻可供參考。但是參照美國消化醫學會(American Gastroenterological Association)在 1999 年所做的回顧性文章，認為儘管吞嚥復健治療對口咽部吞

嚥困難的病患有療效的證據仍不夠充分，但仍建議該類病患接受吞嚥復健治療。^[20]本個案因有無徵狀的吸入之情形，故吞嚥復健主要是在於吞嚥肌群的訓練及吞嚥反射的促進而非直接經口進食訓練。個案接受治療後效果並不明顯而還是需要依賴管灌飲食(tubal feeding)。對於吞嚥復健在此類患者的療效未來仍需收集更多個案以進一步探討。

結 論

我們報告了一名危症後多發性神經肌肉病變併發長期吞嚥障礙的案例，並討論其相關的診斷及治療，然而此病例經復健訓練後，仍需使用管灌飲食。危症後多發性神經肌肉病變在近年來才逐漸的被重視，目前對其致病原因以至於治療的方法仍有諸多未明之處。因此，未來仍迫切需要更多相關研究。

參考文獻

1. Zink W, Kollmar R, Schwab S. Critical illness polyneuropathy and myopathy in the intensive care unit. *Nat Rev Neurol* 2009;5:372-9.
2. Friedrich O. Critical illness myopathy: sepsis-mediated failure of the peripheral nervous system. *Eur J Anaesthesiol Suppl* 2008;42:73-82.
3. Palmer JB, Monahan DM, Matsuo K. Rehabilitation of patients with swallowing disorders. In: Braddom RL, editor. *Physical medicine and rehabilitation*. 3rd ed. Philadelphia: Saunders; 2007. p. 598.
4. van Mook WN, Hulsewe-evers RP. Critical illness polyneuropathy. *Curr Opin Crit Care* 2002;8:302-10.
5. Ropper AH. The Guillain-Barré syndrome. *N Engl J Med* 1992;326:1130-6.
6. Dalakas MC, Hohlfield R. Polymyositis and dermatomyositis. *Lancet* 2003;362:971-82.
7. Richter JE. Oesophageal motility disorders. *Lancet* 2001; 358:823-8.
8. Nguyen NQ, Holloway RH. Recent developments in esophageal motor disorders. *Curr Opin Gastroenterol* 2005;21:478-84.
9. Brown MR, Dyck PJ, McClearn GE, et al. Central and peripheral nervous system complications. *Diabetes* 1982; 31:65-70.
10. Peckett P, Schattner A. Concurrent Bell's palsy and diabetes mellitus: a diabetic mononeuropathy? *J Neurol*

- Neurosurg Psychiatry 1982;45:652-5.
11. Adour K, Wingerd J, Doty HE. Prevalence of concurrent diabetes mellitus and idiopathic facial paralysis (Bell's palsy). *Diabetes* 1975;24:449-51.
12. Benatar M, Edlow J. The spectrum of cranial neuropathy in patients with Bell's palsy. *Arch Intern Med* 2004;164:2383-5.
13. Yuki N, Hirata K. Relation between critical illness polyneuropathy and axonal Guillain-Barré syndrome. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1999;67:128-9.
14. Partanen J, Niskanen L, Lehtinen J, et al. Natural history of peripheral neuropathy in patients with non-insulin-dependent diabetes mellitus. *N Engl J Med* 1995;333:89-94.
15. Latronico N, Shehu I, Seghelini E. Neuromuscular sequelae of critical illness. *Curr Opin Crit Care* 2005;11:381-90.
16. Fletcher SN, Kennedy DD, Ghosh IR, et al. Persistent neuromuscular and neurophysiologic abnormalities in long-term survivors of prolonged critical illness. *Crit Care Med* 2003;31:1012-6.
17. Van den Berghe G, Schoonheydt K, Becx P, et al. Insulin therapy protects the central and peripheral nervous system of intensive care patients. *Neurology* 2005;64:1348-53.
18. Hermans G, Wilmer A, Meersseman W, et al. Impact of intensive insulin therapy on neuromuscular complications and ventilator dependency in the medical intensive care unit. *Am J Respir Crit Care Med* 2007;175:480-9.
19. Needham DM. Mobilizing patients in the intensive care unit: improving neuromuscular weakness and physical function. *JAMA* 2008;300:1685-90.
20. Cook IJ, Kahrilas PJ. AGA technical review on management of oropharyngeal dysphagia. *Gastroenterology* 1999;116:455-78.

Dysphagia in Critical Illness Polyneuropathy and Myopathy: A Case Report

Hung-Chou Chen, Yen-Hsia Hsu, Shin-Ching Chen, Tyng-Guey Wang,¹
Sung-Hui Tseng, Jiunn-Horng Kang

Department of Physical Medicine and Rehabilitation, Taipei Medical University Hospital, Taipei;

¹Department of Physical Medicine and Rehabilitation, National Taiwan University Hospital, Taipei.

Critical illness polyneuropathy and myopathy (CIPNM) is a common complication seen in patients with critical illness. However, long-lasting oropharyngeal dysphagia in patients with CIPNM has not been reported previously. Besides, severe dysphagia is also a rare condition in patients with diabetes. Here, we present the case of a woman with diabetes, who developed neuromuscular weakness after recovery from severe pneumonia and respiratory failure. Brain lesion was excluded by magnetic resonance imaging of brain. CIPNM was confirmed by nerve conduction and electromyographic studies. Videofluoroscopic swallow study showed severe oropharyngeal dysphagia. The general weakness and functional status improved gradually after rehabilitation. However, the dysphagia persisted and she required tubal feeding. Although the pathogenesis of CIPNM is still not well known, adequate rehabilitation program could be beneficial for improving the function of these patients. (Tw J Phys Med Rehabil 2011; 39(2): 117 - 122)

Key Words: critical illness polyneuropathy and myopathy, dysphagia, diabetes mellitus