

黄疸后遗症引起的扭转痉挛1例

叶洁盈, 晏露, 林珍萍, 欧阳辉*

暨南大学附属第一医院康复科, 广东 广州

收稿日期: 2024年12月21日; 录用日期: 2025年1月14日; 发布日期: 2025年1月23日

摘要

黄疸后遗症是新生儿时期发生高胆红素血症从而对大脑造成损害所致的临床后遗症, 扭转痉挛作为黄疸后遗症的远期神经系统并发症较为罕见, 对于该病的具体治疗方案报道较少。本案例报道1例黄疸后遗症引起的扭转痉挛的病例, 患者紧张时头颈不自主向右扭转, 伴有肌张力障碍和步态异常, 通过予以药物、理疗、光照疗法等综合康复治疗, 症状较前缓解, 为该病的临床治疗提供了新的思路。

关键词

黄疸后遗症, 扭转痉挛, 光照疗法, 康复治疗

A Case of Torsion Spasms Caused by Sequelae of Jaundice

Jieying Ye, Lu Yan, Zhenping Lin, Hui Ouyang*

Rehabilitation Department, The First Affiliated Hospital of Jinan University, Guangzhou Guangdong

Received: Dec. 21st, 2024; accepted: Jan. 14th, 2025; published: Jan. 23rd, 2025

Abstract

Sequelae of jaundice is a clinical sequela that arises from hyperbilirubinemia during the neonatal period, leading to cerebral impairment. Torsion spasms, a rare neurological complication of sequelae of jaundice, have been infrequently reported, and there is a paucity of literature addressing treatment options for this condition. In this case, we present a case of torsion spasm resulting from sequelae of jaundice, in which the patient exhibited involuntary right-sided rotation of the head and neck during tension, accompanied by dystonia and impaired gait. The symptoms were mitigated

*通讯作者。

文章引用: 叶洁盈, 晏露, 林珍萍, 欧阳辉. 黄疸后遗症引起的扭转痉挛 1 例[J]. 临床医学进展, 2025, 15(1): 1337-1343.
DOI: 10.12677/acm.2025.151179

following a comprehensive rehabilitation treatment approach that incorporated medication, physical therapy, and light therapy, offering a novel approach for the clinical management of this condition.

Keywords

Jaundice Sequelae, Torsion Spasms, Phototherapy, Rehabilitation Therapy

Copyright © 2025 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 一般资料

患者，28岁，男性，因“头颈不自主扭转15年”入院。患者于15年前发现右手手指不自主呈勾爪状，平衡性差，受到惊吓时易失去平衡甚至摔倒。于当地某三甲医院就诊，完善颅脑CT未见明显异常，诊断为黄疸后遗症，予以康复治疗症状稍有改善。13年前于当地医院复诊，完善颈椎MR未见明显异常，复查颅脑影像提示左侧颞蛛网膜下腔增宽。10年前高考后上述症状加重，紧张时头颈不自主向右扭转，颈部稍后伸，嘴角右斜，双手不自主呈勾爪状，不能握持物体，行走时姿势异常，右下肢动作不自然，言语含糊，声音音调和音量不稳定，患者发声时感到喉部紧张，需用力持续发声。患者精神放松或注意力转移时扭转动作消失，与常人无异。患者为进一步诊疗到我科就诊。患者近期精神、胃纳、睡眠一般，二便未见明显异常，体重未见明显变化。

个人史：孕40周足月顺产，出生听力初筛正常，出生后3天出院。出生后7天发现黄疸，收入当地医院予以照蓝光治疗，1周后出院，家属诉出院时仍有少许黄疸。6月龄坐不稳，儿童保健结果异常，予高压氧治疗。12月龄不能行走，肌张力低下，抓握欠佳，于某三甲医院就诊，予以针灸、按摩治疗。1岁7个月可发“ma”音，不会说“mama”等叠词。3岁可独走。7岁时患儿有阵发性嘴角歪斜。8岁上小学，走路容易摔倒。18岁高考后读大学。24岁毕业从事计算机研发工作。既往史、家族史无特殊。

体格检查：精神一般，言语流利，发音稍含糊，对答切题，高级认知功能无异常。四肢肌力5级。放松时四肢肌张力正常，紧张时肌张力升高。紧张时嘴角右斜，头颈右旋，颈椎稍呈反弓状，双手呈勾爪状，步态异常，言语进一步含糊，声音音调和音量不稳定，发声时喉部肌群紧张。其余查体无异常。

2. 检查

2010年颅脑CT：未见明显异常。

2012年颅脑MR：左侧颞蛛网膜下腔稍增宽，余未见明显异常(图1)。

2012年颈椎MR：1. 颈椎轻度反弓状态；2. 颈3~6椎体上下缘略显毛糙，相应椎间盘信号异常，考虑存在退变(图2)。

2024年颅脑MR + MRS + DTI：1. 头颅MR平扫未见明显异常(图3)；2. MRS示：双侧海马体NAA/Ch、NAA/Cr偏低，左侧更为显著；左侧内囊后支NAA/Ch升高，Ch/Cr降低(具体数值见表1)；3. DTI示两侧大脑半球纤维大致对称(图4)。

2024年脑电图、P300事件相关电位、三大常规、生化全套：未见明显异常。

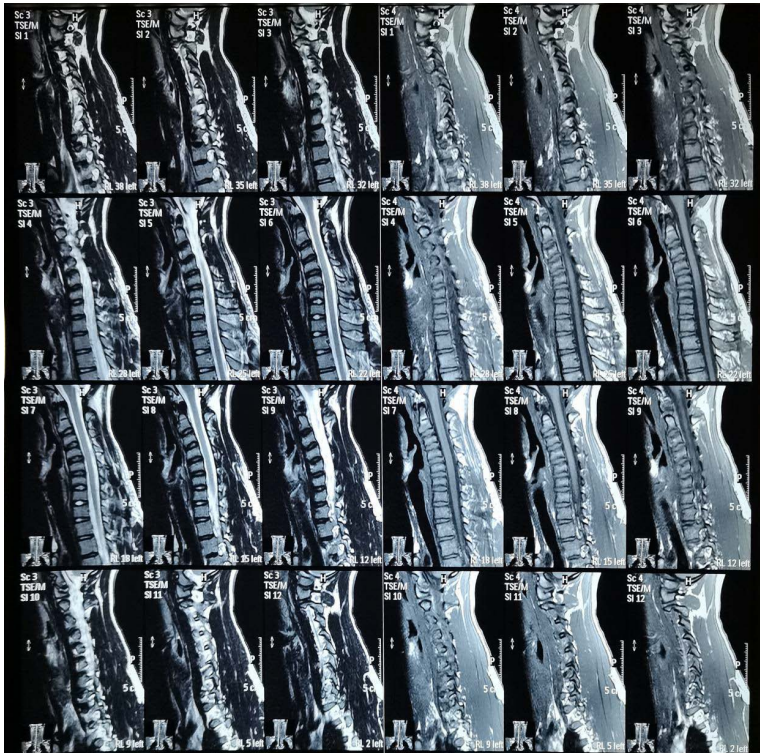


Figure 1. Cranial MRI in 2012
图 1. 2012 年颅脑 MR

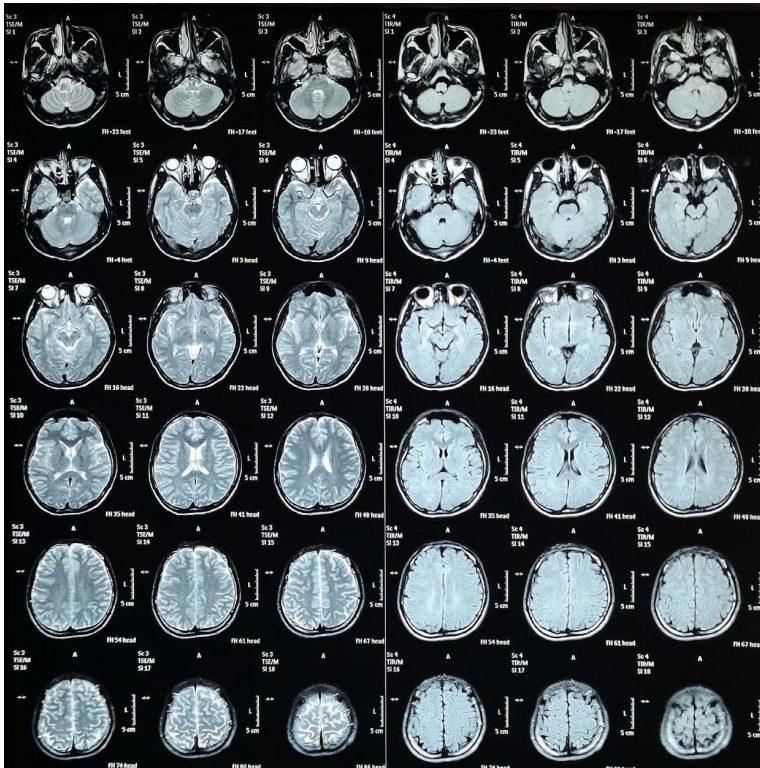


Figure 2. Cervical MRI in 2012
图 2. 2012 年颈椎 MR

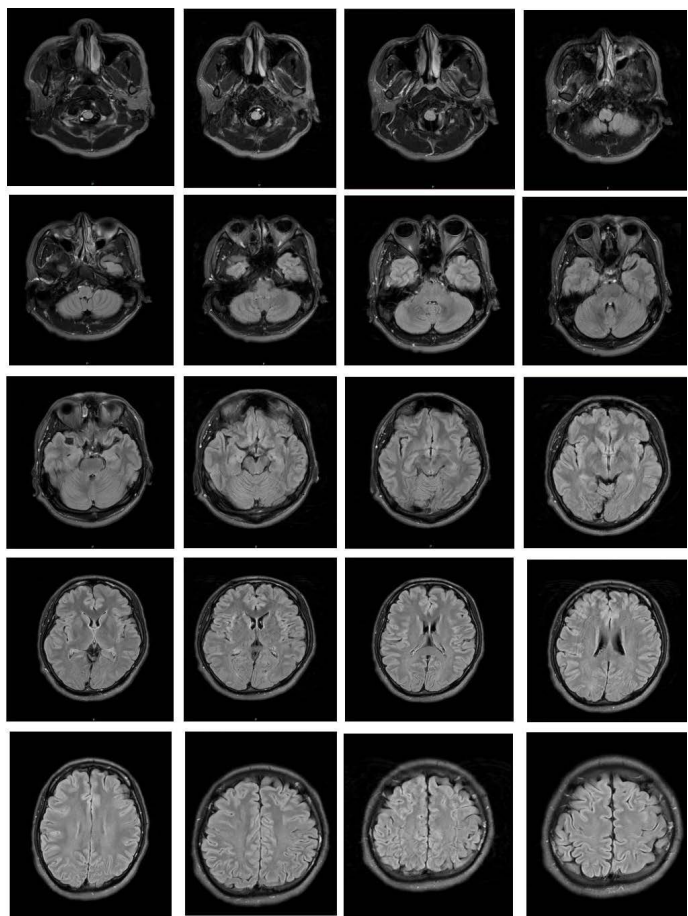


Figure 3. Cranial MRI in 2024
图 3. 2024 年颅脑 MR

Table 1. Cranial MRS in 2024
表 1. 2024 年颅脑 MRS

		NAA	Cr	Ch	NAA/Cr	NAA/Ch	Ch/Cr
海马头	右侧	77,056	52,144	82,496	Cr1.48	0.934	1.58
	左侧	77,056	52,144	82,496	Cr1.48	0.934	1.58
海马体	右侧	73,600	57,712	91,440	1.28	0.805	1.58
	左侧	36,064	52,144	30,208	1.19	0.518	2.30
额叶灰质	右侧	172,144	112,768	111,120	1.53	1.55	0.985
	左侧	158,624	105,712	112,128	1.50	1.41	1.06
额叶白质	右侧	187,904	70,336	76,592	2.67	2.45	1.09
	左侧	139,312	49,680	71,760	2.80	1.94	1.44
内囊后支	右侧	200,896	116,800	113,104	1.72	1.78	0.968
	左侧	177,440	82,032	44,976	2.16	3.95	0.548
壳核	右侧	137,520	78,320	74,224	1.76	1.85	0.948
	左侧	130,320	79,472	92,560	1.64	1.41	1.16

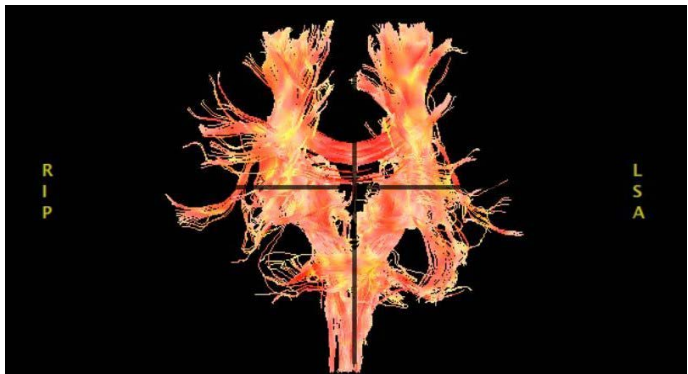


Figure 4. Cranial DTI in 2024
图 4. 2024 年颅脑 DTI

3. 诊断与鉴别诊断

入院诊断：黄疸后遗症。

功能诊断：1. 扭转痉挛；2. 协调障碍；3. 构音障碍。

鉴别诊断：1. 亨廷顿舞蹈病。支持点：患者有不自主的肌肉僵硬、运动协调障碍；不支持点：家族中无类似病史者，颅脑影像学未提示尾状核、苍白球等特定脑区的萎缩。2. 脑性瘫痪：支持点：患者紧张时肌张力异常，伴有运动协调欠佳；不支持点：患者智力正常，颅脑 MR 未提示大脑结构的异常，结合患者既往核黄疸病史可鉴别。

4. 诊治经过

入院后，药物方面，予以氯硝安定口服治疗(0.5 mg tid)。康复治疗方面，予以低频脉冲电刺激降低腰背部、下肢肌群、喉部肌群肌张力，缓解肌肉痉挛(每天 1 次，每次 20 min)；予以直流电下导入镁离子，降低颈部、腰部肌张力，缓解肌肉痉挛(使用 50%硫酸镁溶液、下行电流，阳极放置于颈部，阴极放置于腰部)；予以经颅直流电刺激降低肌张力、改善不自主动作(阴极放置于左侧颈部 C3 处，阳极放置于右侧眼眶上方)；予以弱光光照治疗降低患者易激性，减少紧张发作(500 lux LED 白光，每天 1 小时)；另外，辅以传统康复治疗降低肌张力、改善运动协调功能，包括推拿、抗痉挛训练等。

5. 治疗结果、随访及转归

经过 1 周的药物对症支持治疗及综合康复治疗，家属诉患者易激性较前降低，紧张次数较前减少。患者紧张时头颈不自主向右扭转程度较前减轻，嘴角右斜幅度减小，双手不自觉呈勾爪状，手指弯曲程度较前减轻，行走时姿势异常较前减轻、稳定性较前增加，仍有言语含糊，声音音调和音量较前稍有改善。

6. 讨论

黄疸后遗症是指新生儿时期发生高胆红素血症，从而对脑造成损害所致的临床后遗症[1][2]。当发生高胆红素血症时，胆红素穿过血脑屏障进入大脑，使得脑神经元核染为黄色，导致神经元细胞死亡，并且引起小胶质细胞和星形胶质细胞活化、髓鞘形成受损等等病理性改变，从而造成对基底节、海马、丘脑底核、脑干神经核、小脑等的脑区损害[3]-[6]，造成的长期神经系统损害可能表现为多种功能障碍，包括锥体外系运动障碍、肌张力障碍、手足徐动、听力丧失、智力低下等[4][7]。一项对核黄疸模型小鼠的研究发现，核黄疸可能导致肌张力改变、步态异常、平衡性欠佳、运动协调及整合能力下降[2]。

2003 年窦智杰等报道了 1 例核黄疸后遗症引起的扭转痉挛，与本案例的患者相似，该患者智力正常，

具有不自主扭转运动、面部表情怪异等症状[8],但并未详述治疗方案。

扭转痉挛以肌张力障碍和身体的不随意扭转为特征,分为原发性和继发性,多与基底节的异常有关[9][10]。2014年苏伟对8例扭转痉挛的患者的一项研究发现,8例扭转痉挛的患者在紧张或运动时均有扭转痉挛加重、肌张力升高,安静或放松时症状消失[11],这与本案例患者表现一致。

本案例患者出生后有黄疸不退病史,未及时进行蓝光光照疗法,黄疸持续时间较长,结合患者的症状、体征,考虑患者为黄疸后遗症引起的扭转痉挛。MRS结果提示,患者的双侧海马体代谢异常,左侧更为显著,可能存在胶质细胞增生,海马体与情绪调节功能相关,海马体的损伤可能与患者的易激性较高有关;左侧内囊后支代谢异常,可能存在髓鞘病变,内囊后支的损伤可能引起对侧肢体无力或运动不协调,患者的左侧内囊后支受损,可能与患者发病时头颈不自主向右扭转、行走时右下肢动作不自然有关[3]。研究显示,胆红素损伤后可造成锥体外系病变,导致肌张力障碍、姿势异常、平衡协调障碍,这与苍白球、丘脑底核、脑干神经核、小脑等多个脑区相关[2]。然而,本案例的MRS仅包括基底节、额叶、海马,未能涵盖上述所有脑区,不排除其他脑区存在异常从而导致患者出现锥体外系病变的可能。

患者易激惹紧张,紧张时出现全身多处肌肉痉挛,因此治疗方案需考虑抗痉挛和降低易激性两个方面。除了予以传统运动治疗和手法治疗抗痉挛外,本案例还予以直流电下镁离子导入降低肌张力、改善颈部痉挛。硫酸镁溶液中的镁离子具有抗痉挛的作用。多项研究表明,镁离子可显著缓解肌痉挛、血管痉挛、气道痉挛等[12]-[14]。直流电将镁离子直接导入颈部肌群,可有效缓解颈部肌群的痉挛。

除了外周调控外,本案例还应用了中枢性调控康复治疗进行抗痉挛和降低易激性,如经颅直流电刺激和弱光光照疗法。经颅直流电刺激能调节大脑皮层的兴奋性,阳极增强神经元的兴奋性,阴极能抑制皮层兴奋性[15]。多项研究表明,经颅直流电刺激不仅能够改善痉挛、步态异常、平衡、姿势控制等多项运动功能[16]-[18],并且还具有治疗焦虑、创伤后应激障碍、强迫症等改善情绪的作用[19]。光照疗法能够一定程度上缓解患者的焦虑和易激性[20]。一项荟萃分析提到,弱光干预只需要数百勒克斯即可起到舒缓情绪的作用[21]。Zalta等的一项研究表明,对患有创伤后应激障碍的患者予以每天1小时的500 lux光照疗法能有效改善患者的症状[22]。考虑强光照疗法可能引起烦躁不安、神经过敏、紧张等副作用[23][24],本案例使用光照强度为500 lux的弱光疗法降低患者的易激性和紧张。

此外,氯硝安定的使用也在一定程度上能降低患者的易激性。氯硝安定是一种常见的苯二氮卓类药物。可通过激动 γ -氨基丁酸受体,促进神经细胞的氯离子内流,降低神经细胞的兴奋性,从而减少异常神经元放电,从而起到抗癫痫的作用,对小发作类型的癫痫效果较好。氯硝安定也被用于治疗各种焦虑障碍,如广泛性焦虑症和社交焦虑症。考虑本案例患者紧张时易发生扭转痉挛,因此予以较小剂量的氯硝安定辅助降低兴奋性。

黄疸后遗症引起的扭转痉挛目前报道不多,且对于该类疾病的治疗方案未有统一的意见。本案例为黄疸后遗症引起的扭转痉挛的诊治提供了一定的参考,除使用传统康复疗法和镁离子导入等外周疗法降低患者肌张力、纠正患者异常姿势以外,也应结合经颅直流电、光照疗法等中枢调控方法,降低患者易激性、缓解发作频率,减少黄疸后遗症对患者日常工作生活的影响,提高患者的生活质量。

声 明

该病例报道已获得病人的知情同意。

基金项目

2022年度广州市基础研究计划市校(院)联合资助基础与应用基础研究项目(202201020082)。

参考文献

- [1] 刘义. 胆红素脑病的研究进展[J]. 中国新生儿科杂志, 2007(6): 384-386.
- [2] 刘祎, 肖农, 毛振沙. 核黄疸模型大鼠脑细胞损伤及行为学后遗症的研究[J]. 中国康复理论与实践, 2016, 22(6): 640-644.
- [3] Brites, D. and Fernandes, A. (2015) Bilirubin-Induced Neural Impairment: A Special Focus on Myelination, Age-Related Windows of Susceptibility and Associated Comorbidities. *Seminars in Fetal and Neonatal Medicine*, **20**, 14-19. <https://doi.org/10.1016/j.siny.2014.12.002>
- [4] Przekop, A. and Sanger, T.D. (2011) Birth-Related Syndromes of Athetosis and Kernicterus. In: *Handbook of Clinical Neurology*, Elsevier, 387-395. <https://doi.org/10.1016/b978-0-444-52014-2.00030-6>
- [5] Vaz, A.R., Silva, S.L., Barateiro, A., Falcão, A.S., Fernandes, A., Brito, M.A., et al. (2011) Selective Vulnerability of Rat Brain Regions to Unconjugated Bilirubin. *Molecular and Cellular Neuroscience*, **48**, 82-93. <https://doi.org/10.1016/j.mcn.2011.06.008>
- [6] 韦民英, 黄永穗. 一例核黄疸后遗症的 CT 诊断[J]. 右江民族医学院学报, 1988(Z1): 96-97.
- [7] Watchko, J.F. and Tiribelli, C. (2013) Bilirubin-induced Neurologic Damage—Mechanisms and Management Approaches. *New England Journal of Medicine*, **369**, 2021-2030. <https://doi.org/10.1056/nejmra1308124>
- [8] 窦志杰, 李宇彤, 滕春芳, 等. 核黄疸后遗症-运动障碍疾病 2 例临床观察[J]. 承德医学院学报, 2003(3): 264-265.
- [9] 任文庆, 田增民. 扭转性痉挛和神经干细胞治疗[J]. 中国临床神经外科杂志, 2012, 17(7): 444-446.
- [10] Cao, S., Hewett, J.W., Yokoi, F., Lu, J., Buckley, A.C., Burdette, A.J., et al. (2010) Chemical Enhancement of Torsina Function in Cell and Animal Models of Torsion Dystonia. *Disease Models & Mechanisms*, **3**, 386-396. <https://doi.org/10.1242/dmm.003715>
- [11] 苏伟. 中西医结合治疗扭转痉挛 8 例[J]. 光明中医, 2014, 29(5): 1048+1089.
- [12] 赵淑芹, 臧艳静, 张宸豪, 等. 硫酸镁防治蛛网膜下腔出血时脑血管痉挛的研究[J]. 中风与神经疾病杂志, 2012, 29(2): 162.
- [13] 付会芳. 超声雾化吸入硫酸镁对慢性肺心病急性发作期治疗效果的研究[Z]. 清苑: 清苑县妇幼保健院, 2007.
- [14] 张建余, 张兆平, 房宇宁, 等. 不同剂量硫酸镁预处理预防老年患者依托咪酯引起的肌痉挛效果观察[J]. 现代中西医结合杂志, 2014, 23(32): 3617-3618.
- [15] 何峰, 何蓓蓓, 王仲朋, 等. 经颅电、磁刺激的神经康复研究进展与应用展望[J]. 中国医疗器械杂志, 2020, 44(6): 513-519.
- [16] 焦睿, 陈尚杰, 余淑芳. 经颅直流电对痉挛的治疗作用研究进展[J]. 新医学, 2019, 50(7): 481-484.
- [17] 陈程, 江钟立. 经颅直流电刺激对步态调节的研究进展[J]. 中国康复医学杂志, 2022, 37(3): 393-398.
- [18] 董柯, 练涛. 经颅直流电刺激对脑卒中患者平衡功能影响的研究进展[J]. 中国康复医学杂志, 2022, 37(10): 1425-1429.
- [19] Xie, L., Hu, P., Guo, Z., Chen, M., Wang, X., Du, X., et al. (2024) Immediate and Long-Term Efficacy of Transcranial Direct Current Stimulation (TCDS) in Obsessive-Compulsive Disorder, Posttraumatic Stress Disorder and Anxiety Disorders: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Translational Psychiatry*, **14**, Article No. 343. <https://doi.org/10.1038/s41398-024-03053-0>
- [20] 陶倩, 苏国辉. 光疗在脑功能调控康复中的应用[J]. 康复学报, 2024, 34(4): 316-322.
- [21] Golden, R.N., Gaynes, B.N., Ekstrom, R.D., Hamer, R.M., Jacobsen, F.M., Suppes, T., et al. (2005) The Efficacy of Light Therapy in the Treatment of Mood Disorders: A Review and Meta-Analysis of the Evidence. *American Journal of Psychiatry*, **162**, 656-662. <https://doi.org/10.1176/appi.ajp.162.4.656>
- [22] Zalta, A.K., Bravo, K., Valdespino-Hayden, Z., Pollack, M.H. and Burgess, H.J. (2019) A Placebo-Controlled Pilot Study of a Wearable Morning Bright Light Treatment for Probable PTSD. *Depression and Anxiety*, **36**, 617-624. <https://doi.org/10.1002/da.22897>
- [23] Labbate, L.A., Lafer, B., Thibault, A. and Sachs, G.S. (1994) Side Effects Induced by Bright Light Treatment for Seasonal Affective Disorder. *The Journal of Clinical Psychiatry*, **55**, 189-191.
- [24] Terman, M. and Terman, J.S. (1999) Bright Light Therapy: Side Effects and Benefits across the Symptom Spectrum. *The Journal of Clinical Psychiatry*, **60**, 798-808. <https://doi.org/10.4088/jcp.v60n1113>