

# 不宁腹综合征1例报道及文献复习

王小刚 黄宇靖 宋永斌 焦岩 马孝俊 徐江涛

【关键词】 特发性震颤； 不宁腹综合征； 周期性肢动症； 多导睡眠监测； 多巴胺能药物

doi: 10.3969/j.issn.1009-6574.2017.09.020

**Restless abdomen syndrome: a case report and literature review** WANG Xiao-gang, HUANG Yu-jing, SONG Yong-bin, et al. Department of Neurology, General Hospital of Xinjiang Military Command, Urumqi 830000, China

【Key words】 Essential Tremor; Restless abdomen syndrome; Periodic limb movement; Polysomnography; Dopaminergic drugs

不宁腿综合征, 又称 Willis-Ekbom 疾病, 是一种运动感觉障碍与引起入睡困难的节律性睡眠障碍疾病<sup>[1]</sup>。不宁腿综合征的主要特点是夜间无法抑制的活动腿的冲动, 有一种难以形容的肢体不适感, 活动后缓解<sup>[2]</sup>。在大多数情况下, 不宁腿综合征在放松安静状态或睡眠期间也会有不自主、周期性肌肉抖动(PLMS)。这些症状常出现在下肢, 然而身体其他部分也可能受影响, 可表现在上肢、背部、腹部、膀胱<sup>[3-6]</sup>, 故渐渐出现不宁腿综合征的变异型, 但临床极为少见。国内尚未见到类似报道, 现对1例不宁腹综合征的临床特点进行分析, 报道如下。

## 1 临床资料

患者为老年男性, 66岁, 主因“双下肢不自抖动、失眠5年余”入院。患者自述2012年1月开始无明显诱因出现右下肢站立时抖动, 情绪激动或饥饿时加重, 行走或坐卧位休息时抖动消失, 睡眠时可减轻, 2年后渐渐发展至左下肢, 性质较前相同, 曾于当地医院就诊, 给予美多巴125 mg口服试验性治疗, 症状无改善, 诊断为“特发性震颤”。2015年初出现夜间睡眠时出现上腹部不适, 难以描述其性质, 有不可控制的拍腹、深压腹、震动腹部等冲动, 活动后好转, 严重影响入睡, 在当地医院行钡餐检查无明显异常, 曾给予保护胃黏膜、调节情绪治疗, 效果差。于2015年5月就诊新疆军区总医院, 查血常规、贫血组合正常, 血清铜、铜蓝蛋白、甲状腺功能正常, 眼底镜检查未见K-F环, 腹部超声未见异常。甲状腺超声未见明显异常。胃镜示: 慢性非萎缩性胃炎。头颅核磁示: (1) 双侧侧脑室周围缺血性改变; (2) 双侧

筛窦炎、左侧下鼻甲肥大; (3) 脑血管MRA符合动脉粥样硬化表现, 右侧大脑前动脉水平段纤细。神经电生理检查未见异常。

多导睡眠图示: (1) 不符合睡眠呼吸暂停-低通气综合征; (2) 睡眠结构紊乱, 总睡眠时间2小时51分, 醒觉13次, 觉醒时间2小时1分, NREM期睡眠潜伏期2小时37分, NREM期83.38%, I期睡眠24.78%, II期睡眠58.60%, III及IV期睡眠比例为0, REM期16.61%。夜间最快心率86次/min(06: 24), 最慢心率36次/min(23: 57), 最高血压136/89 mmHg(01: 14, 1 mmHg=0.133 kPa), 最低血压42/27 mmHg(00: 17), PLMS指数0。多导睡眠图波形见图1。

诊断为“不宁腹综合征; 特发性震颤”。给予多巴丝肼片125 mg, 1次/晚, 口服, 不宁腹症状好转。

2017年5月自觉双下肢不自抖动较前稍加重再次住院, 复查甲功八项: 甲状腺素36.00 ng/ml(↓), 甲状腺吸碘率: 24 h吸碘率降低, 甲状腺超声正常。复查多导睡眠图示: 睡眠结构: 总睡眠时间7小时35分, 醒觉0次, NREM潜伏期2分30秒, NREM期85.49%, I期睡眠1.42%, II期睡眠71.97%, III及IV期睡眠比例为12.08%, REM期14.50%。夜间最快心率219次/min(01: 07), 最慢心率17次/min(05: 23), 最高血压179/119 mmHg(06: 17), 最低血压81/54 mmHg(03: 50), PLMS指数6.03。复查多导睡眠图波形见图2。

明确诊断为“不宁腹综合征; 特发性震颤; 周期性肢动症; 慢性失眠症”, 给予多巴丝肼片3/4片、多糖铁复合物150 mg口服, 1次/d治疗, 出院随访患者不宁腹、夜间不自抖动、失眠情况较前改善。

## 2 讨论

此例不宁腹综合征临床表现符合不宁腿综合征

作者单位: 830000 新疆军区总医院神经内科

通讯作者: 徐江涛 Email: xujiangtao1959@163.com

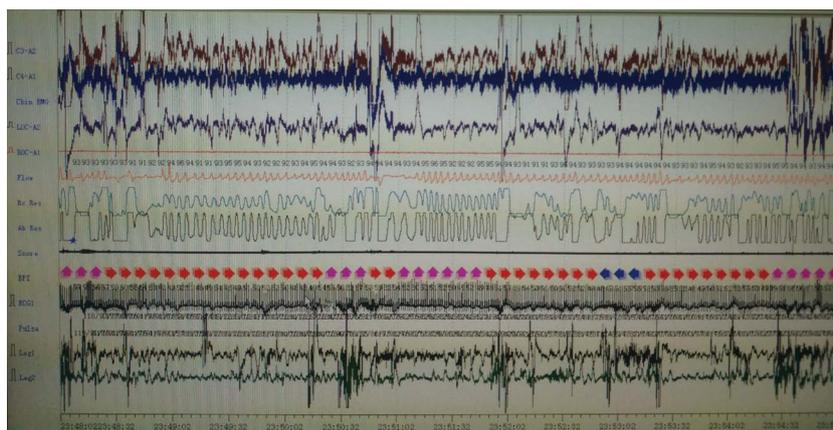


图1 多导睡眠图波形

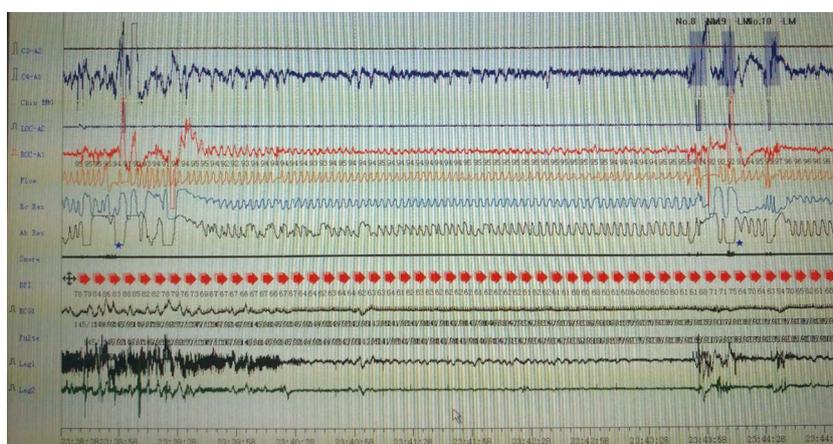


图2 复查多导睡眠图波形

症状学特点和诊断标准,完善腹部影像学检查及血液相关检查排除腹腔脏器病变,完善多导睡眠图示NREM潜伏期较长,NREM I期及II期比例增多,慢波睡眠期比例明显减少,醒觉次数增多,有周期性肢动表现,且伴有同步不规律的腹式呼吸,这种呼吸形式也许可作为不宁腹综合征的辅助监测。诊断明确后给予美多巴治疗症状改善明显。

除腿部之外,上肢、臀部、躯干、背部、膀胱、生殖器、腹部也会出现在不宁腿综合征中<sup>[3-7]</sup>,特别在病情严重病例中<sup>[1]</sup>或在症状加重时。不宁腿综合征的发病机制仍不清楚,可能与脊柱L4~S1段的脊髓高度活动性有关<sup>[8]</sup>。而T7~T12胸段脊膜超兴奋活动可能与不宁腹症状有关。临床上服用小剂量多巴胺受体激动剂和铁剂后不宁腹症状明显改善<sup>[4,9]</sup>。

Pérez-Díaz等<sup>[4]</sup>报道3例不宁腹综合征,通过病史、视频多导睡眠图、腹部影像学、血清与基因检查,这些患者由于夜间入睡前腹部不适有较严重的入睡困难、睡眠维持困难,腹部影像检查正常,可合并周期性肢动症,使用低剂量多巴胺能类药物有效,且发现BTBD9基因与不宁腿综合征有关。Baiardi等<sup>[10]</sup>报道了不宁腹与脊肌阵挛的少见叠加综合征1例,通

过视频多导睡眠图明确不宁腹直肌与脊肌阵挛在夜间发生频率,录制患者夜间不自主拍腹及其他动作,两者共同影响入睡潜伏期,可能有着共同的多巴胺能活动失调机制,使用小剂量多巴胺受体激动剂普拉克索治疗有效。而本例患者多导睡眠图监测的是腹部运动,通过腹带中的电阻或其他导电物质感受腹部活动的存在或消失,未能直接监测腹直肌收缩产生的电活动,因条件有限未能视频监控夜间活动,但发现图中腹部运动与腿动、眼球运动、下颌部位的肌肉活动同步变化,说明不宁腹使患者处于觉醒状态,无法入睡。

不宁腹综合征患者有严重的入睡困难、觉醒次数增多,这与不宁腿综合征相同<sup>[11]</sup>。国内一项研究中夜间多导睡眠图结果显示,不宁腿综合征患者夜间睡眠的数量较少(睡眠总时间、睡眠效率、睡眠中清醒时间),并且不宁腿综合征患者夜间睡眠的周期性腿动指数以及与周期性腿动指数相关的觉醒次数明显增多<sup>[12]</sup>。多导睡眠图检查显示,RLS患者睡眠潜伏期延长,周期性肢体运动相关觉醒增加,总睡眠时间减少,慢波睡眠减少,睡眠效率下降。这些特点在此例不宁腹综合征患者表现较为典型,虽为不宁

腿综合征的变异型, 部位上的区别并不影响其症状学特点。

此例患者起初有特发性震颤, 后出现不宁腿综合征。而特发性震颤是一种常见的具有遗传倾向的运动障碍性疾病, 其确切病因并不清楚, 30%~50%患者有家族史。震颤的产生是丘脑和运动皮质支脊髓通路中小脑-橄榄核环路震荡的结果。因此, 特发性震颤与不宁腿综合征的发病机制不同, 国内外尚无两者相关性或共病的研究。此例患者2年后出现夜间下肢明显不自主活动, 多导睡眠图提示PLMS指数>5。PLMS是一种睡眠相关的运动障碍, 以睡眠期反复出现不自主的肢体运动为特征, 主要见于下肢, 偶尔累及上肢, 表现为脚趾伸展、踝背屈、膝髌屈曲。PLMS在不宁腿综合征患者中尤其高发, 达80%~88%<sup>[13]</sup>。不宁腿综合征中的PLMS形式表明胫前肌首先被激动, 而轴向肌肉像腹直肌的收缩发生率为3%~6%<sup>[14]</sup>。Esaki等<sup>[15]</sup>报道1例周期性腹部运动, 其临床表现与不宁腿综合征相同, 但多导睡眠图提示腹部运动与PLMS有相似的周期性变化。而本例患者未监测腹部运动指数, 其是否为周期性腹部运动不能排除。周期性肢动症多是由于多巴胺能活动失调所致, 多巴胺能类药物治疗成为这些运动障碍和睡眠障碍疾病的关键。

本研究发现此患者再次就诊我院复查甲状腺激素水平稍低, 吸碘率低于正常, 考虑与患者长期服用多巴丝肼片药物有关。甲状腺激素是由多巴胺调节, 而多巴胺能系统是通过肝脏CYP450酶的生物化学功能完成调节, CYP450酶的活动会下调甲状腺激素水平; 且多巴胺与多巴胺受体激动剂可阻滞促甲状腺激素的分泌, 也导致甲状腺激素降低<sup>[16-17]</sup>。故该患者明确诊断不宁腿综合征后坚持服用多巴胺能类药物, 通过CYP450活动而影响甲状腺素分泌。

不宁腿是不宁腿综合征的变异型, 临床上需注意进行与消化系统疾病的鉴别, 临床上易误诊、漏诊、误治。可通过多导睡眠图监测腹直肌收缩电活动, 录制视频可以看到患者难以抑制的频繁深压腹部或拍打动作, 还可监测腿动指数了解有无合并原发性周期性肢动症。建议以后遇到不宁腿综合征及各种变异型时, 充分利用和拓展多导睡眠图的多样功能, 监测腹直肌、背阔肌、面肌等肌肉收缩产生的电活动, 了解不宁部位的肌肉收缩频次及幅度, 对于诊断及治疗意义重大。

#### 参 考 文 献

[1] Allen RP, Picchiotti D, Hening WA, et al. Restless legs syndrome: diagnostic criteria, special considerations, and epidemiology. A report from the restless legs syndrome diagnosis

and epidemiology workshop at the National Institutes of Health [J]. *Sleep Med*, 2003, 4(2): 101-119.

- [2] Sateia MJ. International classification of sleep disorders—third edition; highlights and modifications [J]. *Chest*, 2014, 146(5): 1 387-1 394.
- [3] Ruppert E, Cretin B, Meyer C, et al. Characterization of periodic upper limb movement disorder in a patient with restless arms syndrome [J]. *Mov Disord*, 2012, 27(11): 1 459-1 461.
- [4] Pérez-Díaz H, Iranzo A, Rye DB, et al. Restless abdomen: a phenotypic variant of restless legs syndrome [J]. *Neurology*, 2011, 77(13): 1 283-1 286.
- [5] Umehara H, Sumitani S, Ohmori T. Restless legs syndrome with chest and back restlessness as the initial symptom [J]. *Psychiatry Clin Neurosci*, 2010, 64(2): 211.
- [6] Suzuki K, Miyamoto M, Uchiyama T, et al. Restless Bladder in an Elderly Woman: An Unusual Feature or a Variant of Restless Legs Syndrome? [J]. *Intern Med*, 2016, 55(18): 2 713-2 716.
- [7] Aquino CC, Mestre T, Lang AE. Restless genital syndrome in Parkinson disease [J]. *JAMA Neurol*, 2014, 71(12): 1 559-1 561.
- [8] Tassinari CA, Cantalupo G, Högl B, et al. Neuroethological approach to frontolimbic epileptic seizures and parasomnias: The same central pattern generators for the same behaviours [J]. *Rev Neurol (Paris)*, 2009, 165(10): 762-768.
- [9] Pappas SS, Tiernan CT, Behrouz B, et al. Neonatal androgen-dependent sex differences in lumbar spinal cord dopamine concentrations and the number of A11 diencephalospinal dopamine neurons [J]. *J Comp Neurol*, 2010, 518(13): 2 423-2 436.
- [10] Baiardi S, La Morgia C, Mondini S, et al. A restless abdomen and propriospinal myoclonus like at sleep onset: an unusual overlap syndrome [J]. *BMJ Case Rep*, 2015, 2015.
- [11] Allen RP, Stillman P, Myers AJ. Physician-diagnosed restless legs syndrome in a large sample of primary medical care patients in western Europe: Prevalence and characteristics [J]. *Sleep Med*, 2010, 11(1): 31-37.
- [12] 丁岩, 冯阳, 王玉平, 等. 不安腿综合征与原发失眠患者夜间多导睡眠图对比分析 [J]. *北京医学*, 2014, 36(8): 672-674.
- [13] Nannapaneni S, Ramar K. Periodic limb movements during sleep and their effect on the cardiovascular system: is there a final answer? [J]. *Sleep Med*, 2014, 15(4): 379-384.
- [14] Provini F, Vetrugno R, Meletti S, et al. Motor pattern of periodic limb movements during sleep [J]. *Neurology*, 2001, 57(2): 300-304.
- [15] Esaki Y, Kitajima T, Tsuchiya A, et al. Periodic abdominal movements [J]. *Psychiatry Clin Neurosci*, 2014, 68(2): 167.
- [16] Delitala G. Dopamine and T.S.H. secretion in man [J]. *Lancet*, 1977, 2(8 041): 760-761.
- [17] Wójcikowski J, Gołembowska, Daniel WA. Regulation of liver cytochrome P450 by activation of brain dopaminergic system: physiological and pharmacological implications [J]. *Biochem Pharmacol*, 2008, 76(2): 258-267.

(收稿日期: 2017-08-12)