

症例報告

口腔内セネストパチーを呈した進行性核上性麻痺の1例

医療法人社団踏青会 下総病院 精神科

熊谷 亮

要 旨

口腔内セネストパチーを呈した進行性核上性麻痺の症例を経験したため、ここに報告する。症例は80歳女性、元々うつ病として治療を受けていたが、ある年を境に口腔内違和感を強く訴えるようになり、口腔内セネストパチーに発展した。4年後には体幹部の固縮や眼球運動障害・前頭葉機能障害も目立つようになり、進行性核上性麻痺を発病したと診断された。前頭葉機能障害のなかでも、右前頭葉に障害が生じると自己や人・場所・物などへの慣れ・親近感に支障を来し、その結果、人や環境などの外部からの刺激と、自伝的記憶から作ったそれらの刺激に対するイメージを一致させることが困難になるとされている。本症例では、同様の機序によって自伝的記憶に則した身体的イメージと現実の身体状態との間に不一致が生じ、その結果として強い身体的違和感を呈し、ここに前頭葉機能障害による判断力低下が加わることで、最終的に口腔内セネストパチーを呈したものと考えられた。

<Case report>

A Case of Progressive Supranuclear Palsy Developed Oral Cenesthopathy

Ryo Kumagai

Department of Psychiatry, Shimofusa Hospital

2472-2 Yonamoto, Yachiyo, Chiba 276-0015, Japan

責任著者連絡先：〒276-0015 千葉県八千代市米本2472番地2

Tel : 047-488-2135 E-mail : shimofusa_rk@yahoo.co.jp

はじめに

身体の違和感を、奇妙な、時にグロテスクな表現を用いて訴える症状はセネストパチーと呼ばれている。本邦では1950年代末頃から注目されるようになり、特に口腔領域に発生しやすいことから口腔内セネストパチー (oral cenesthopathy : OC) として取り上げられることが多くなった¹⁾。患者はまず身体的治療を求め各身体科を受診することが多いが、心気症とは異なり身体疾患の有無は心配の対象にはならず、身体的異常の有無を確認するよりも違和感の除去を求めることが多い¹⁾。原疾患としては統合失調症やうつ病、脳器質性疾患、中毒性疾患などの精神科疾患が挙げられ¹⁾²⁾、半数は薬物療法に反応すると報告されているが、難治性とする報告²⁾も多い。

本稿では、進行性核上性麻痺 (progressive supranuclear palsy : PSP) の症状としてOCを呈した症例について報告する。報告については本人・家族から承諾を得ており、また個人が特定される可能性がある箇所には要旨に支障を来さない程度に改変を施している。

I 症例提示

【症例】 80歳、女性

主訴：「舌が伸びてくる」「口の中が逆さになっている」などの口腔内違和感。

既往歴：慢性心不全、洞不全症候群 (ペースメーカー植込み後)。

家族歴：特記すべきことなし。

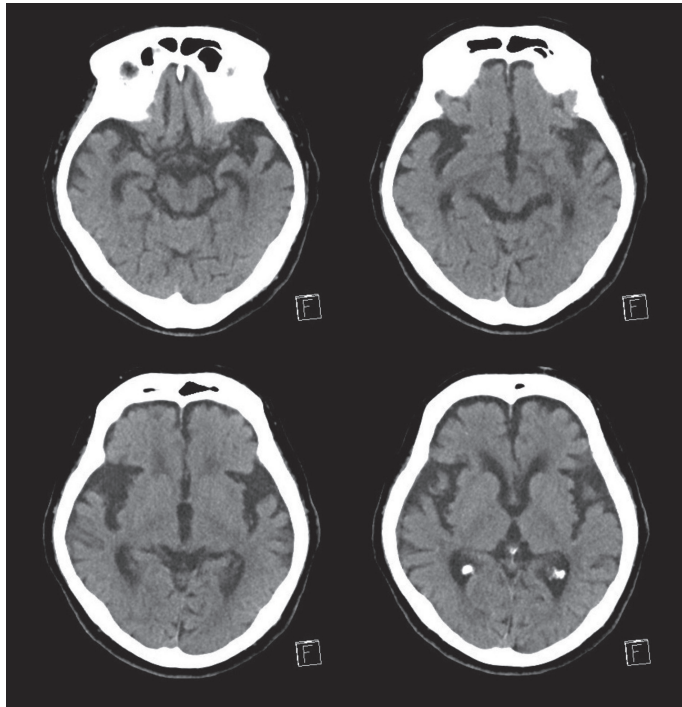
生活歴：発育・生育歴に大きな問題はない。中学卒業後から仕事に就き、26歳で現夫と結婚し2児をもうけている。

現病歴：X-54年の出産後に抑うつ気分・意欲低下・不眠などを呈するようになり、X-49年からA病院でうつ病として治療が開始された。症状は再発性で、A病院には複数回の入院歴がある。

X-7年にB病院でペースメーカー植込み術が施行され、以降はB病院に通院するようになった。X-5年頃から身体的違和感を訴えるようになり、特に「口の中が変な感じがする」などの口腔内違和感が訴えの中心になった。X-4年からは「口が飛んで行ってなくなっちゃう」「舌がよじれてギザギザになっている」など奇妙な表現を伴うようになり、OCに発展した。訴えは執拗で、本人からは繰り返し入院要求があったが、入院中に気に入らないことがあるとすぐに退院要求があり、B病院では短期間の入院が十数回繰り返された。薬物療法としてlithiumやlamotrigine・venlafaxineなどの処方や調整が行われたが、症状は安定しなかった。症状や入院要求などの常同的な訴え方や、入院中のわがままな言動、病状説明に対する理解の低下から認知症も疑われたが、診断確定には至らなかった。長期療養できる環境が必要と判断され、X年4月にC病院に転入院となった。

C病院入院後も「舌が伸びて出てきちゃう」「口の中が上下逆さになっている」などの訴えや、これに伴う食事量の低下が続いたが、抑うつ気分や悲壮感などの表出は強くはなかった。一方で、気に入らないことがあると大声を上げる・手押し車を強く押して遠くへ飛ばすなどの易怒性や衝動性が認められた。身体的には動作緩慢が目立ち、体幹部を中心に固縮が認められた。上下の眼球運動は左右に比べて速度が低下しており、本人にも「下の方が見づらい」という自覚症状があった。手押し車を使っでの歩行には問題はなかったが、pull testでは後方への易転倒性が示された。

認知機能検査は、Mini Mental State Examinationは18点と低下しており、前頭葉機能を評価するFrontal Assessment Batteryも7点と低下を認めた。脳画像検査では、頭部CTにて両側の前頭葉から側頭葉にかけての脳萎縮と、第3脳室および四丘体槽の拡大が認められた (Photo 1)。脳血流シンチでは両



両側の前頭葉から側頭葉にかけての脳萎縮と、第3脳室および四丘体槽の拡大を認める。

Photo 1 症例の頭部CT

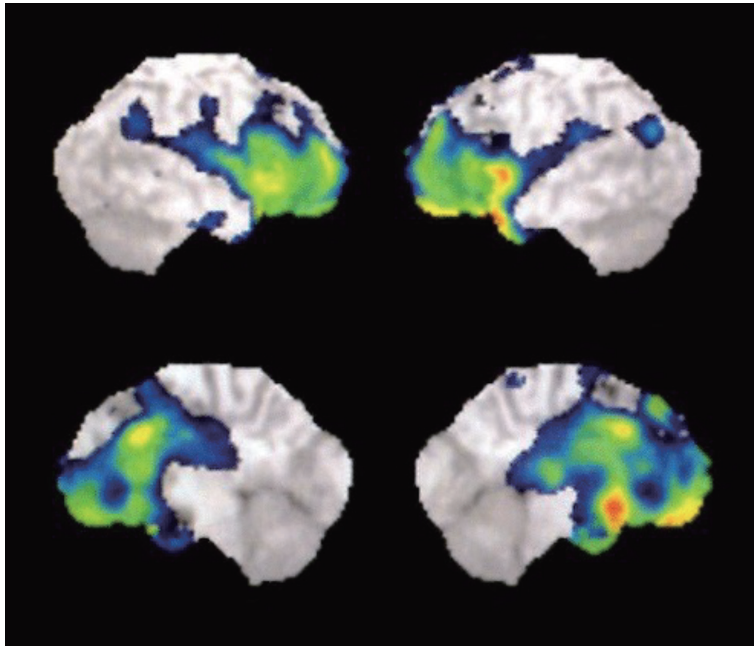
側の前頭葉に著明な血流低下を (Photo 2), 脳ドパミントランスポーターシンチでは両側の黒質線条体での取り込み低下をそれぞれ認めた (Photo 3)。なお、心疾患の合併がありペースメーカー植込み後でもあることから、頭部MRI・MIBG心筋シンチは行わなかった。

臨床所見および画像検査からPSPと診断し、本人・家族にも改めて病状説明を行い、大幅な薬物調整を開始した。Lithiumなどの中止やquetiapine・mirtazapineの併用が行われ、食事量や衝動性は改善したが、OCは残存し看護ステーションに繰り返し訪れては訴えを続けた。このため作業療法を併用し、また訴えを傾聴しつつ話題を変えたりすることで、本人に安心感を抱かせるとともに興味・関心を他に逸らすように対応を続けた。X+3年現在はquetiapine 75mg/日・mirtazapine 30mg/日

を継続中。ADLは車椅子上に低下したが、病棟スタッフの対応もあって病院内では比較的問題なく過ごせている。

II 考 察

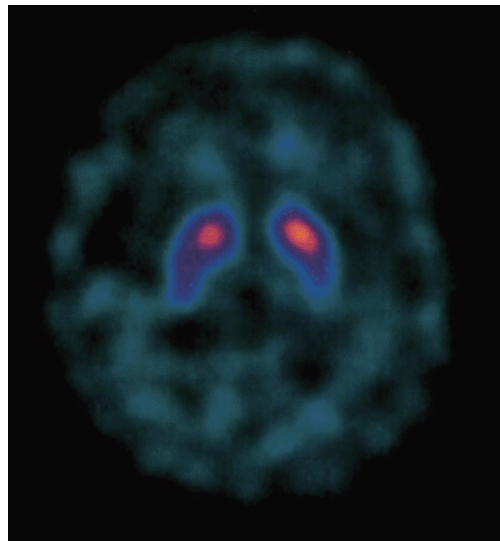
本症例は元々うつ病として治療が続けられていたが、X-5年を境に口腔内違和感が主訴となり、さらにX-4年にはOCに発展した。同時期から前頭葉機能障害による常同性、抑制欠如も出現し、X年には同様に前頭葉機能障害による衝動性や易怒性の他にも、体幹部の固縮や眼球運動の制限が認められるようになった。各検査結果と合わせてPSPを発症したと診断し、対応方針を変更することでOCは残存するものの病院内では問題なく過ごせるようになった。



¹²³I-IMPを使用。両側の前頭葉で著明な血流低下を認める。

Photo 2 症例の脳血流シンチ

PSPは、脳内の神経細胞およびグリア細胞に4リピートタウが蓄積することで生じる神経変性疾患である³⁾。稀な疾患とされてきたが、本邦では高齢化に伴い患者数の増加が示唆されている⁴⁾。典型例は早期からの転倒を伴う姿勢保持障害・垂直性眼球運動障害・皮質下前頭葉性認知症を呈しRichardson症候群と呼ばれるが³⁾、近年では他にも様々な病型があり、中心となる症状もそれぞれ異なることが判明してきた。2017年にThe Movement Disorder Societyが作成した診断基準⁵⁾では8つの病型に分類されており、本症例はこのなかではprobable PSP-F（ほぼ確実な、前頭葉徴候を主徴とするPSP）に該当する。PSPの画像検査では、脳形態画像検査で中脳被蓋や橋・前頭葉・頭頂葉・小脳の萎縮や、第3脳室・四丘体槽・脚間槽・側脳室・中脳水道の拡大を認める⁶⁾。脳血流シンチでは前頭葉での血流低下を認めるが、皮質基底核変性症のような脳血流の左右差は認められない⁷⁾。脳ドパミン



¹²³I-ioflupaneを使用。両側の黒質線条体での取り込み低下を認める。

Photo 3 症例の脳ドパミントランスポーターシンチ

トランスポーターシンチでは線条体の集積低下が認められるが、一方でパーキンソン病などとは異なり、MIBG心筋シンチではH/M比の低下は認められない⁸⁾ (本症例ではMIBG心筋シンチは未施行)。本症例の画像検査結果も、PSPの診断を支持すると考えられた。

OCの原疾患として脳器質性疾患が認められることは先述したが、報告されている検査所見は右前帯状回および両側視床での血流増加⁹⁾や、前頭側頭葉の脳血流の左右差(右>左)¹⁰⁾、脳血管性障害¹¹⁾など様々である。そのなかには、本症例と同様に前頭葉機能障害を伴う症例の報告^{12)~14)}も散見される。これまでの研究で、右前頭葉の障害は側頭葉領域や辺縁領域とのネットワークが同時に障害され、自己・人・場所・物などへの慣れや親近感に支障を来すとされている。その結果、人や環境など外部からの刺激と、自分自身が持ち続けてきた自伝的記憶から作ったそれら刺激に対するイメージを一致させることが困難となる¹⁵⁾。これはCapgras症状や重複記憶錯誤などの妄想性誤認症候群の発生機序とされているが¹⁵⁾、本症例でも、同様の機序で自伝的記憶に則した身体的イメージと現在の身体状態との間に不一致が生じ、強い身体的違和感を生じさせた可能性がある。さらに前頭葉機能低下による判断力の低下から、現実的な判断ができず常識的ではない判断や了解しにくい判断を起こしてしまい¹⁶⁾、結果として奇妙な表現を伴うセネストパチーを発症させたのではないだろうか。

現在までにOCに対する有効な薬物療法は確立されていない。その原因が多岐にわたることも理由の1つと考えられる。本症例では原疾患であるPSPにも有効な薬物療法が示されていないことから、OCの完全な消失を求めず、より楽しいことが他にあるように入院生活の環境を調整していった。生活のリズムを整え、症状を少しでも和らげる患者なりの対応を行い¹⁷⁾、薬物療法にすべてを求めないということも病態によっては必要なのかもしれない。

利益相反

開示すべき利益相反はない。

文 献

- 1) 宮岡 等, 田野尻俊郎. 口腔内セネストパチー. In: 中安信夫(編), 稀で特異な精神症候群ないし状態像. 東京, 星和書店; 2004. p.100-8.
- 2) 井川雅子, 山田和男. 向精神薬が著効した口腔内セネストパチーの3例. 日本口腔顔面痛学会雑誌 2017; 10: 17-22.
- 3) Giagkou N, Höglinger GU, Stamelou M. Progressive supranuclear palsy. *Int Rev Neurobiol.* 2019; 149: 49-86.
- 4) Osaki Y, Morita Y, Kuwahara T, et al. Prevalence of Parkinson's disease and atypical parkinsonian syndromes in a rural Japanese district. *Acta Neurol Scand.* 2011; 124: 182-7.
- 5) Höglinger GU, Respondek G, Stamelou M, et al. Clinical diagnosis of progressive supranuclear palsy: the Movement Disorder Society criteria. *Mov Disord.* 2017; 32: 853-64.
- 6) Schonfeld SM, Golbe LI, Sage JI, et al. Computed tomographic findings in progressive supranuclear palsy: correlation with clinical grade. *Mov Disord.* 1987; 2: 263-78.
- 7) Sławek J, Lass P, Derejko M, Dubaniewicz M. Cerebral blood flow SPECT may be helpful in establishing the diagnosis of progressive supranuclear palsy and corticobasal degeneration. *Nucl Med Rev Cent East Eur.* 2001; 4: 73-6.
- 8) Ogawa T, Fujii S, Kuya K, et al. Role of Neuroimaging on Differentiation of Parkinson's Disease and Its Related Diseases. *Yonago Acta Med.* 2018; 61: 145-55.
- 9) 舘野 周, 木村真人, 下田健吾ほか. セネストパチーの¹²³I-IMP SPECT所見: うつ病との比較. 脳と精神の医学 2001; 12: 127-32.
- 10) Umezaki Y, Katagiri A, Watanabe M, et al. Brain perfusion asymmetry in patients with

- oral somatic delusions. *Eur Arch Psychiatry Clin Neurosci.* 2013 ; **263** : 315-23.
- 11) Hanihara T, Takahashi T, Washizuka S, et al. Delusion of oral parasitosis and thalamic pain syndrome. *Psychosomatics.* 2009 ; **50** : 534-7.
- 12) 佐藤田鶴子, 長谷川 功, 石井隆資ほか. 歯科治療中に遭遇したピック病の1症例. *日歯心身* 1998 ; **13** : 105-10.
- 13) 坪内 健, 小林孝文, 中村友則ほか. 塩酸ドネペジルが奏効した口腔内セネストパチーの1例. *精神医学* 2003 ; **45** : 1107-9.
- 14) 中山寛人. 口腔内セネストパチーが先行した前頭側頭型認知症の一例. *精神科治療学* 2018 ; **33** : 125-30.
- 15) Sahoo A, Josephs KA. A Neuropsychiatric Analysis of the Cotard Delusion. *J Neuropsychiatry Clin Neurosci.* 2018 ; **30** : 58-65.
- 16) 本間房恵, 木村真人, 村田雄一ほか. ロールシャッハ・テストによる口腔領域セネストパチーの心理学的特徴. *心身医学* 2003 ; **43** : 599-607.
- 17) 宮地英雄, 和気裕之, 三橋 晃ほか. 高齢者の口腔内セネストパチー. *老年精神医学雑誌* 2009 ; **20** : 160-4.

(受理日 : 2023年9月13日)