

複雑幻視がくりかえし出現した複雑部分発作重積： ¹²³I-IMP-SPECT, 脳 MRI および脳波をもちいた検討

坂井 利行^{1)*} 近藤 昌秀¹⁾ 富本 秀和²⁾

要旨：症例は 72 歳の女性例である。複雑部分発作重積による複雑幻視発現時の頭部 MRI 拡散強調画像で右頭頂葉、後頭葉と側頭葉に gyriform cortical hyperintensity をみとめた。動きが主体の複雑幻視初発時の発作中¹²³I-IMP-SPECT で右頭頂-後頭-側頭葉外側下部に高集積を、人物像のみが出現した複雑幻視再発時の発作中に右頭頂葉外側に著明な高集積をみとめ、発作中脳波で両側後頭部～側頭後部に rhythmic polyspikes が数度出現した。自験例は右頭頂-後頭-側頭部の陳旧性脳挫傷がてんかん性焦点となり、複雑幻視発作時にこれらの領域にててんかん性活動を捉えることができたまれな症例である。

(臨床神経 2015;55:580-584)

Key words：複雑幻視, 複雑部分発作重積, ¹²³I-IMP-SPECT, 脳 MRI, 脳波

はじめに

複雑幻視が発現する病態として解放現象とてんかん性起源が知られている¹⁾。自験例は複雑部分発作重積を呈し、複雑幻視のみをきたしたことが特異的であり、複雑幻視の発作中に *N*-isopropyl-*l*-(iodine-123)-iodoamphetamine single photon emission computed tomography (¹²³I-IMP-SPECT) において、右の頭頂-後頭-側頭葉外側下部と右の頭頂葉外側に高集積をみとめ、てんかん性複雑幻視の責任病巣としてこれらの領域の関与が確認された。¹²³I-IMP-SPECT からてんかん性活動が賦活化される病態について検討を加える。

症 例

第 1 回入院：

症例：72 歳 女性

主訴：主として左側視野内に、人の顔やカーテンに水が流れる光景がみえる

既往歴：20 歳時 右側脳挫傷, 60 歳時 高血圧症。

現病歴：2011 年 5 月中旬過ぎから、突然、左側視野内に知人の顔、ピンク色の物体や、カーテンに水が流れ落ちたりあるいは廊下に水がこぼれている光景などがみえるのを経験したが、1 分程度で消失した。これらの現象が主として左側視野内に、時に全視野内に頻回に出現するようになったため、当科を受診し精査目的で入院した。

一般身体所見：血圧：150/86 mmHg。

神経学的所見：意識は Japan Coma Scale (JCS) I-2 で、認知機能は Mini-Mental State Examination (MMSE) で 19/30 点と軽度低下を示した。幻視に関して現実のものではないことを認識していた。脳神経系では眼球運動は制限がなく、後日、眼科における定量視野検査で左同名半盲をみとめたが、他の眼疾患の指摘はなかった。

入院時検査所見 (Fig. 1, 2)：血液検査では各種自己抗体や腫瘍マーカーは異常がなかった。髄液検査は異常がなく、HSV PCR は陰性であった。複雑幻視出現 5 日後の頭部 MRI 拡散強調画像 (DWI) (Fig. 1A) において右頭頂葉、後頭葉および側頭葉にかけて脳血管支配域に一致しない高信号域 (gyriform cortical hyperintensity²⁾; GCH) をみとめ、T₂WI では右頭頂-後頭-側頭部において陳旧性出血病変に合致する低信号域をみとめた。

入院後臨床経過：複雑幻視発症 7 日後の発作間歇期脳波において基礎波は 9~10 Hz で右の後頭部～側頭後部に低振幅を示し、鋭波 (75~150 μV) が右の後頭部に限局して約 10 秒間、数度散発的に出現した。複雑幻視発症 14 日後、発作中¹²³I-IMP-SPECT (Fig. 1C, D) において右頭頂葉外側は明らかな低集積を、右の前頭葉は軽度高集積を、右の頭頂-後頭-側頭葉外側下部は高集積を示した。幻視は 17 日間持続した後自然に消失した。

*Corresponding author: 済生会松阪総合病院・神経内科 [〒 515-8557 三重県松阪市朝日町 1 区 15-6]

¹⁾ 済生会松阪総合病院・神経内科

²⁾ 三重大学大学院医学系研究科・神経病態内科学

(Received November 25, 2014; Accepted March 20, 2015; Published online in J-STAGE on June 6, 2015)

doi: 10.5692/clinicalneuroi.cn-000680

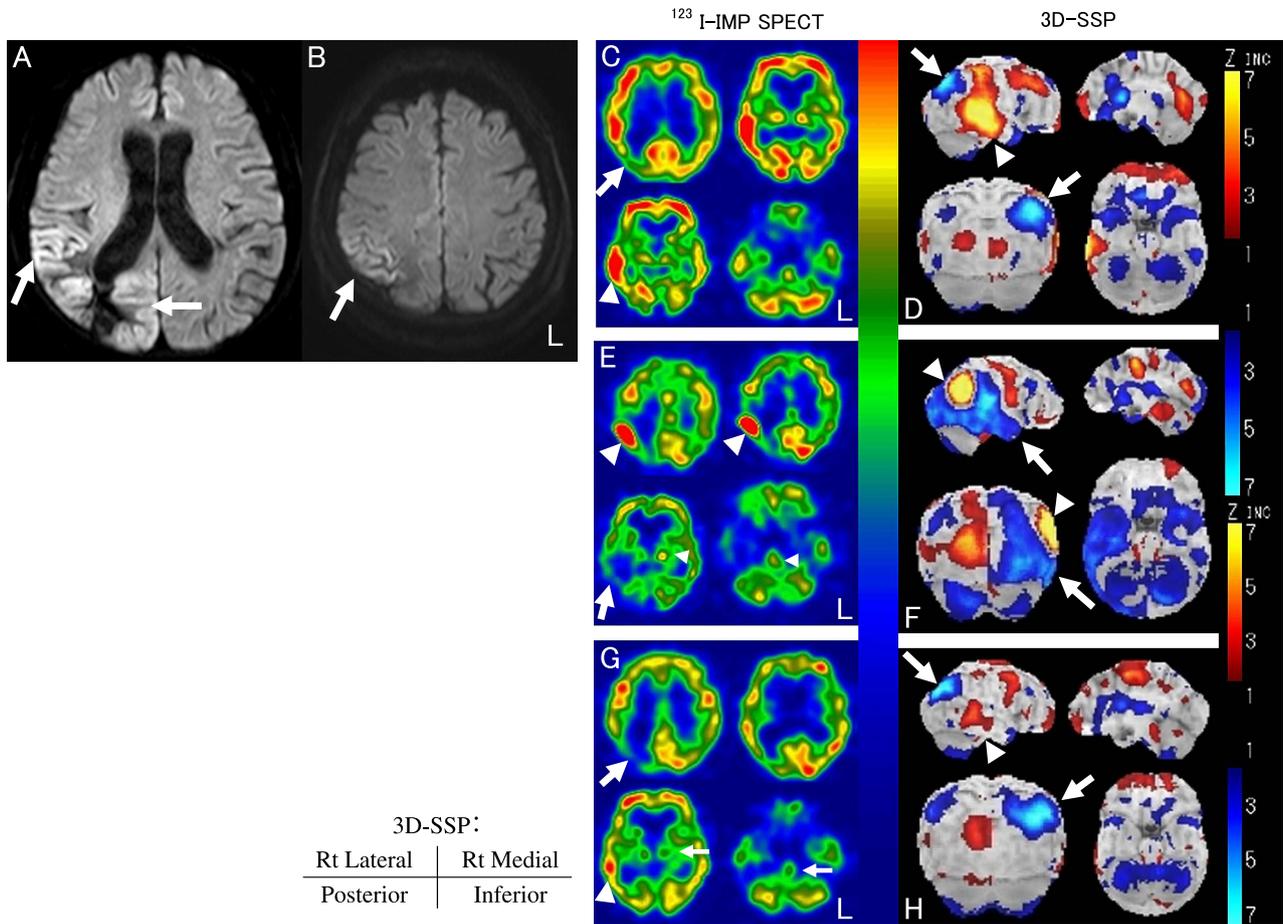


Fig. 1 Magnetic resonance images.

A: Brain diffusion-weighted magnetic resonance image (DWI) 5 days after onset of complex visual hallucinations (CVH) reveals gyriform cortical hyperintensity (GCH) in the right parietal, occipital and temporal lobes (arrows). (Axial, 3 T; TR 5,000 ms, TE 59.18 ms, b value = 1,000 sec/mm²)
 B: On second admission, brain DWI (Axial, 3 T; TR 5,000 ms, TE 55.594 ms, b value = 1,000 sec/mm²) reveals GCH in the right parietal, occipital and temporal lobes (arrows). C and D: On first admission, ictal ¹²³I-IMP-SPECT with 3D-SSP 14 days after the onset of CVH reveals marked hypoperfusion in the right lateral parietal region (arrows), mild hyperperfusion in the right frontal region, and hyperperfusion in the right latero-inferior parieto-occipito-temporal region (arrowheads). E and F: On second admission, ictal ¹²³I-IMP-SPECT with 3D-SSP 1 day after recurrence of CVH reveals marked hyperperfusion in the right lateral parietal region (arrowheads), mild hypoperfusion in the right thalamus, marked hypoperfusion in the right latero-inferior parieto-occipito-temporal region (arrows), and mild hyperperfusion in the left thalamus and brainstem (small arrowheads). G and H: On second admission, interictal ¹²³I-IMP-SPECT with 3D-SSP analysis 28 days after recurrence of CVH reveals marked hypoperfusion in the right lateral parietal region (arrows), recovery of hypoperfusion in the right latero-inferior parieto-occipito-temporal region (arrowheads), and normalization of mild hyperperfusion in the left thalamus and brainstem (small arrows).
¹²³I-IMP SPECT, *N*-isopropyl-*p*-(iodine-123)-iodoamphetamine single photon emission computed tomography; 3D-SSP, three-dimensional stereotactic surface projection.

第2回入院：

主訴：主として左側視野内に亡くなっている夫の姿がみえる

現病歴：2012年5月上旬頃から、主として視野の左側にすでに亡くなっている夫の姿がみえると訴え、当科へ再入院した。

神経学的所見：意識はJCS I-3で、認知機能は入院3日後のMMSEで13/30と低下していた。

入院時検査所見：頭部DWI (Fig. 1B)において右の頭頂葉、後頭葉と側頭葉にGCHを、左の視床に高信号域をみとめた。

入院後臨床経過と検査所見 (Fig. 1, 2)：複雑幻視再発時の発作中 ¹²³I-IMP-SPECT (Fig. 1E, F)において右の頭頂葉外側は著明な高集積を、右の視床は軽度低集積を、右の頭頂-後頭-側頭葉外側下部は低集積を、および左の視床と脳幹は軽度高集積を示した。発作中脳波 (Fig. 2)において基礎波は9~10 Hzと保たれていたが右側は低振幅で、両側 (右側優位)・後頭部~側頭後部に限局して20秒以上持続する高振幅性 (100~200 μV)、12 Hzのrhythmic polyspikesが数度出現した。複雑部分発作重積と診断し、バルプロ酸 (VPA) 600 mg/日

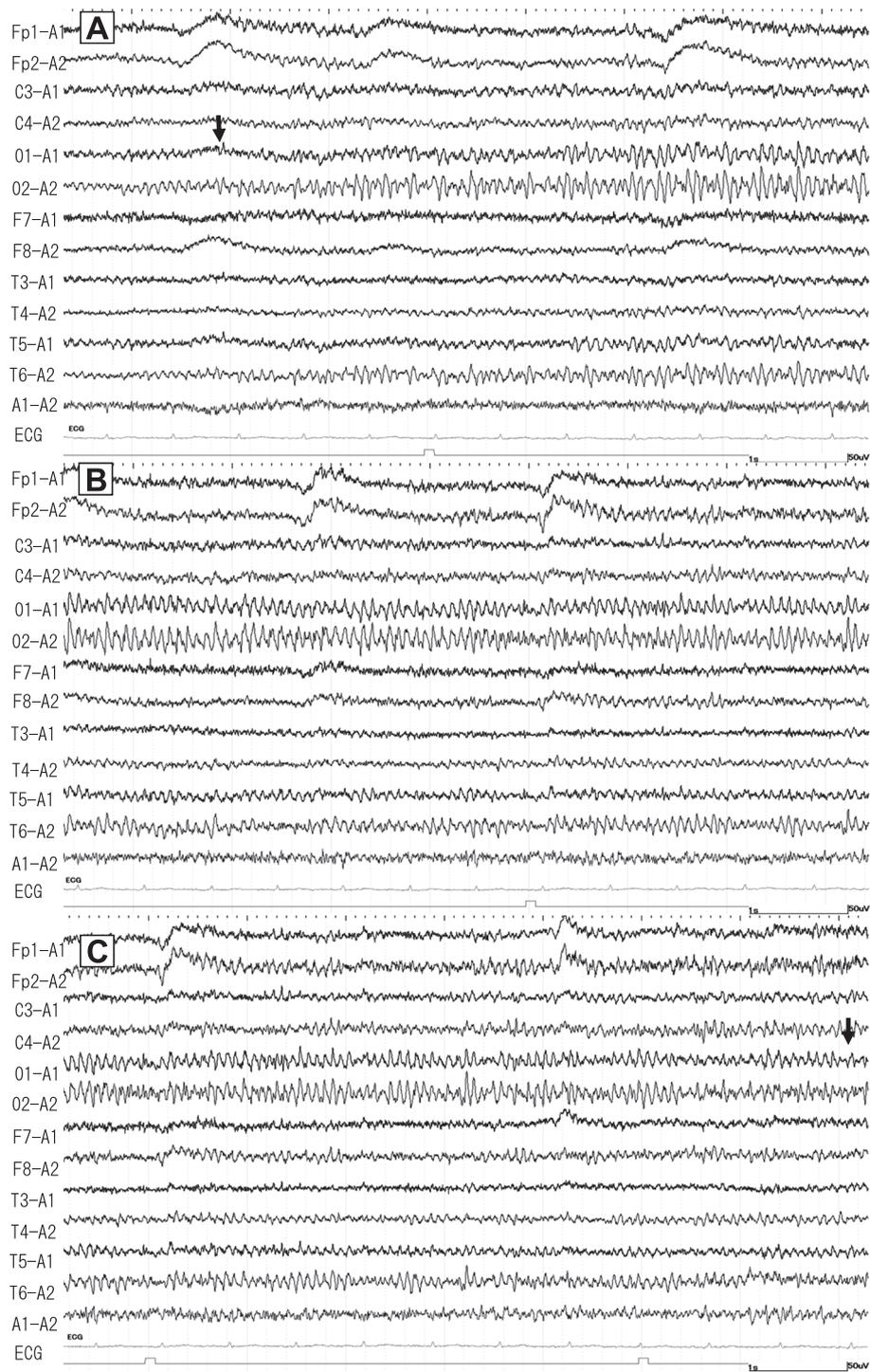


Fig. 2 Electroencephalogram on second admission.

A–C: EEG 1 day after recurrence of CVH reveals rhythmic polyspikes at 12 Hz with high amplitude (100–200 μ V) in bilateral posterior occipital and temporal regions with the right side dominance for 20 seconds and more. A: The arrow shows the onset of CVH. C: The arrow shows the end of CVH. CVH, complex visual hallucination.

とレベチラセタム 1,000 mg/日を投与した。数日後から複雑幻視はまったく出現しなくなった。発作間歇期 123 I-IMP-SPECT (Fig. 2G, H)では右の頭頂葉外側は明らかな低集積を示し、右の頭頂–後頭–側頭葉外側下部の低集積は回復し、左の視床

と脳幹の集積は正常化した。発作間歇期脳波では前回までみられた rhythmic polyspikes はみられなくなった。意識清明時の MMSE は 22/30 点を示した。

考 察

自験例の幻視は複雑幻視¹⁾であると考えられる。複雑幻視は抗てんかん薬で消失したり、ほとんどは自然軽快することが報告されている³⁾。他に鑑別すべき疾患としてはreversible posterior leukoencephalopathy syndrome (RPLS) や Charles Bonnet syndrome が考えられたが、いずれも否定される。

半盲視野内に限局して出現する複視は release phenomenon による病態が一般的には考えられる。しかし、自験例においては複雑幻視発現時に意識低下を随伴しており、脳 MRI DWI²⁾ や脳波所見から CPSE と診断され、てんかん性複雑幻視に合致する。

てんかん性複雑幻視は非優位半球側頭葉で多く出現することが知られている⁴⁾⁵⁾。複雑幻視の発現には、てんかん性焦点からの刺激が頭頂葉、後頭葉や側頭葉周辺のより広範囲の領域 (symptomatogenic region) に波及し誘発される¹⁾⁶⁾ことが推定されているが特定はされていない。その際、visual association cortex³⁾ や辺縁系⁷⁾ の関与も推定されている。Penfield ら⁵⁾ は後頭葉皮質周辺の側頭葉後部刺激で複雑幻視が誘発され、Geier ら⁸⁾ は、脳深部電極で記録した後頭葉てんかんの1例において、てんかん性放電が後頭-側頭葉皮質に波及する時に複雑幻視が出現したと報告している。

症候発現における責任病巣の特定には発作中における脳深部電極をもちいた脳波記録、positron emission tomography (PET) や脳血流 SPECT がとりわけ重要であり、これらの同時期検査が必須である⁹⁾。これまで、てんかん性複雑幻視のみを呈した発作中脳血流 SPECT は報告されていない⁴⁾¹⁰⁾。Singh ら⁴⁾ は唯一、左側 mesial temporal sclerosis の患者において複雑幻視と幻聴を呈し、発作中脳血流 SPECT で左の側頭葉前部、視床後部および両側紡錘回の高集積所見を報告した。當間ら¹⁰⁾ は右側頭葉に脳腫瘍を有する患者において、要素性幻視、複雑幻視と視覚保続 (polyopia と palinopsia) などのてんかん性視覚発作を報告したが、複雑幻視の原因病巣特定にはいたらなかった。

自験例はてんかん起源で複雑幻視のみを呈したことが特異的である。初回発作では動きが主体の複雑幻視が出現しており、これらは頭頂-後頭-側頭葉外側下部の連合野と関連し

ていることが推定される¹⁾⁶⁾。一方、2回目発作では人物像のみの複雑幻視が出現しており、右の頭頂葉外側と関連していることが推定される。これまで発作中の脳血流 SPECT において頭頂葉外側のみが高集積を示した報告はなく、特筆すべき知見と考えられる。

※本論文に関連し、開示すべき COI 状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

文 献

- 1) Sveinbjornsdottir S, Duncan JS. Parietal and occipital lobe epilepsy: a review. *Epilepsia* 1993;34:493-521.
- 2) Landberg MG, O'Brien MW, Norbash AM, et al. MRI abnormalities associated with partial status epilepticus. *Neurology* 1999;52:1021-1027.
- 3) Lance JW. Simple formed hallucinations confined to the area of a specific visual field defect. *Brain* 1976;99:719-734.
- 4) Singh RK, Glynn SM, Garton HJ, et al. Hallucinations and reversed cerebral dominance in mesial temporal sclerosis. *Pediatr Neurol* 2011;45:121-124.
- 5) Penfield W, Perot P. The brain's record of auditory and visual experience. A final summary and discussion. *Brain* 1963;86:595-696.
- 6) Salanova V, Andermann F, Olivier A, et al. Occipital lobe epilepsy: electroclinical manifestations, electrocorticography, cortical stimulation and outcome in 42 patients treated between 1930 and 1991. *Surgery of occipital lobe epilepsy. Brain* 1992; 115:1655-1680.
- 7) Gloor P, Olivier A, Quesney LF, et al. The role of the limbic system in experiential phenomena of temporal lobe epilepsy. *Ann Neurol* 1982;12:129-144.
- 8) Geier S, Bancaud J, Tarairach J, et al. Signification des corrélations électro-cliniques au cours de crises visuelles enregistrées en télé-S.E.E.G. *Rev Electroencephalogr Neurophysiol Clin* 1973; 3:355-359.
- 9) Theodore WH, Newmark ME, Sato S, et al. [¹⁸F] Fluorodeoxyglucose positron emission tomography in refractory complex partial seizures. *Ann Neurol* 1983;14:429-437.
- 10) 當間圭一郎, 田口敬子, 池田昭夫ら。てんかん性視覚保続発作に内側側頭葉と頭頂葉の関与が示唆された1例。 *臨床神経* 2012;52:651-655.

Abstract

Complex partial status epilepticus with recurrent episodes of complex visual hallucinations: study by using ^{123}I -IMP-SPECT, brain MRI and EEGToshiyuki Sakai, M.D.¹⁾, Masahide Kondo, M.D.¹⁾ and Hidekazu Tomimoto, M.D.²⁾¹⁾Department of Neurology, Saiseikai Matsusaka General Hospital²⁾Department of Neurology, Graduate School of Medicine, Mie University

We report a 72-year-old woman with complex partial status epilepticus who showed recurrent episodes of complex visual hallucinations (CVH). Brain diffusion-weighted magnetic resonance images revealed gyriform cortical hyperintensity in the right parietal, occipital and temporal lobes, and brain magnetic resonance angiography revealed a hyperintensity in the right dilated middle cerebral artery during ictal period. Ictal *N*-isopropyl-*p*-(iodine-123)-iodoamphetamine single photon emission computed tomography (^{123}I -IMP-SPECT) with three-dimensional stereotactic surface projection (3D-SSP) 14 days after the onset of the first CVH revealed hyperperfusion in the right latero-inferior occipito-temporal region with relation to motion. CVH spontaneously subsided 17 days after the onset of the first CVH. CVH recurred one year after the first CVH. Ictal ^{123}I -IMP-SPECT with 3D-SSP revealed marked hyperperfusion in the right lateral parietal region probably with relation to face and figure hallucinations. Ictal scalp EEGs revealed rhythmic polyspikes at 12 Hz with high amplitude (100–200 μV) in bilateral posterior occipital and temporal region with the right side dominance for 20 seconds and more in several occasions. Interictal ^{123}I -IMP-SPECT with 3D-SSP 28 days after recurrence of CVH revealed marked hypoperfusion in the right lateral parietal region, and recovery of hypoperfusion in the right latero-inferior occipito-temporal region. These findings suggest that ictal CVH might be induced by the spread of epileptic discharges from the right parieto-occipito-temporal region with the old brain contusion (epileptogenic region) to the right latero-inferior occipito-temporal region and the right lateral parietal region (symptomatogenic regions).

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2015;55:580-584)

Key words: complex visual hallucination, complex partial status epilepticus, ^{123}I -IMP-SPECT, brain MRI, EEG