

## 症例報告

## 非痙攣性てんかん重積状態にたこつぽ型心筋症を合併した1例

植村 順一<sup>1)\*</sup> 和田 裕子<sup>1)</sup> 八木田佳樹<sup>1)</sup>

要旨：症例は61歳、女性。会話がかみ合わなくなり、家族とともに来院した。痙攣や意識消失はなかったが、脳波で左前頭側頭部に発作時てんかん波を、脳血流シンチグラフィーで左側頭葉の血流増加を認めた。以上より左中大脳動脈領域の陳旧性脳梗塞を焦点とした非痙攣性てんかん重積状態と診断した。入院時12誘導心電図では認めなかった陰性T波が第3病日に出現し、経胸壁心臓超音波では左室心尖部を中心に無収縮領域を認めた。冠動脈造影検査で冠動脈狭窄所見がなかったことより、たこつぽ型心筋症と診断した。非痙攣性てんかん重積状態にたこつぽ型心筋症を合併した報告はほとんどなく、貴重な症例と考えられたため報告する。

(臨床神経 2016;56:852-856)

Key words：非痙攣性てんかん重積状態、たこつぽ型心筋症、心電図変化

## はじめに

たこつぽ型心筋症は、1990年に本邦において提唱された疾患概念であり、急性心筋梗塞と類似した臨床症状、心電図所見を呈し、心尖部の無収縮と心基部の過収縮に伴い、左室造影所見でたこつぽ状の形態をとることを特徴とする<sup>1)</sup>。近年、たこつぽ型心筋症と脳疾患の関連が注目されている。たこつぽ型心筋症レジストリーの解析では、脳疾患は呼吸器疾患、術後・骨折について3番目(15.5%)に頻度の高い合併疾患である<sup>2)</sup>。脳疾患の中で痙攣状態にたこつぽ型心筋症を合併する症例報告は散見されるが<sup>3,4)</sup>、非痙攣性てんかん重積状態にたこつぽ型心筋症を合併する例はほとんど報告されていない。今回我々は、非痙攣性てんかん重積状態にたこつぽ型心筋症を合併した1例を経験した。臨床上示唆に富む症例と考えたため、文献的考察を含めて報告する。

## 症 例

患者：61歳、女性

主訴：言葉がうまくでない

生活歴：喫煙歴あり(1日30本を40年間)。

既往歴：56歳から高血圧、60歳時脳梗塞(左中大脳動脈領域)、甲状腺機能亢進症、膀胱癌(膀胱摘出、尿管皮膚瘻術後)があり、カルベジロール2.5mg/日、チアマゾール10mg/日内服していた。

現病歴：2015年1月某日から意味不明な発語が多いことに娘が気付いていた。3日後、発語がなく、右上下肢に力が

入らなくなったため当科を受診した。

入院時現症：身長149cm、体重39kg、血圧122/90mmHg、脈拍120/分・整、呼吸数21/分、体温35.9℃。頸部・眼窩部に血管雑音なし。肺音、心音に特記所見なかった。神経学的所見では、意識レベルはJapan Coma Scale I-3であった。自発語に乏しく、物品呼称は一部可能であった。開閉眼の単純命令のみ従うことができた。意識障害のために、より詳細な言語機能評価は困難であった。脳神経では眼位は正中、眼球運動障害はなく、麻痺性構音障害、嚥下障害を認めた。四肢の麻痺はなく、感覚障害もなかった。四肢腱反射は正常で、病的反射は陰性だった。

検査所見：血算は異常なく、生化学ではT-Chol 316mg/dl、HDL-C 79ng/dl、LDL-C 203ng/dlと脂質異常症を認めた。また凝固・線溶系はD-dimer 1.4μg/mlと軽度上昇していた。内分泌検査では血漿BNPが204.3pg/mlと高値であった。腎機能、肝機能、電解質、アンモニア、血液ガスは異常がなかった。12誘導心電図は心拍数120/分と頻脈だったが、洞調律でST-T変化、陰性T波はなかった。胸部レントゲンはCTR 60%、肺野清明、頸部血管エコーは特記所見なく、経頭蓋超音波検査では右左シャント陰性だった。脳波では基礎波11Hzα波、左側頭部記録でsharp waveがあり、双極誘導でphase reversal変化を認め(Fig. 1)、同部位を焦点とした部分発作が示唆された。入院時の頭部MRI拡散強調画像(DWI)で左視床枕に淡い高進号を、FLAIR画像で左中大脳動脈領域に陳旧性脳梗塞を認めた(Fig. 2)。頭部MRAで主要血管に明らかな狭窄性病変はなかった。

入院後経過：てんかん重積状態を疑い、ホスフェニトイン

\*Corresponding author: 川崎医科大学脳卒中医学教室〔〒701-0192 岡山県倉敷市松島577番地〕

<sup>1)</sup> 川崎医科大学脳卒中医学教室

(Received August 1, 2016; Accepted October 24, 2016; Published online in J-STAGE on November 25, 2016)

doi: 10.5692/clinicalneurology-000929



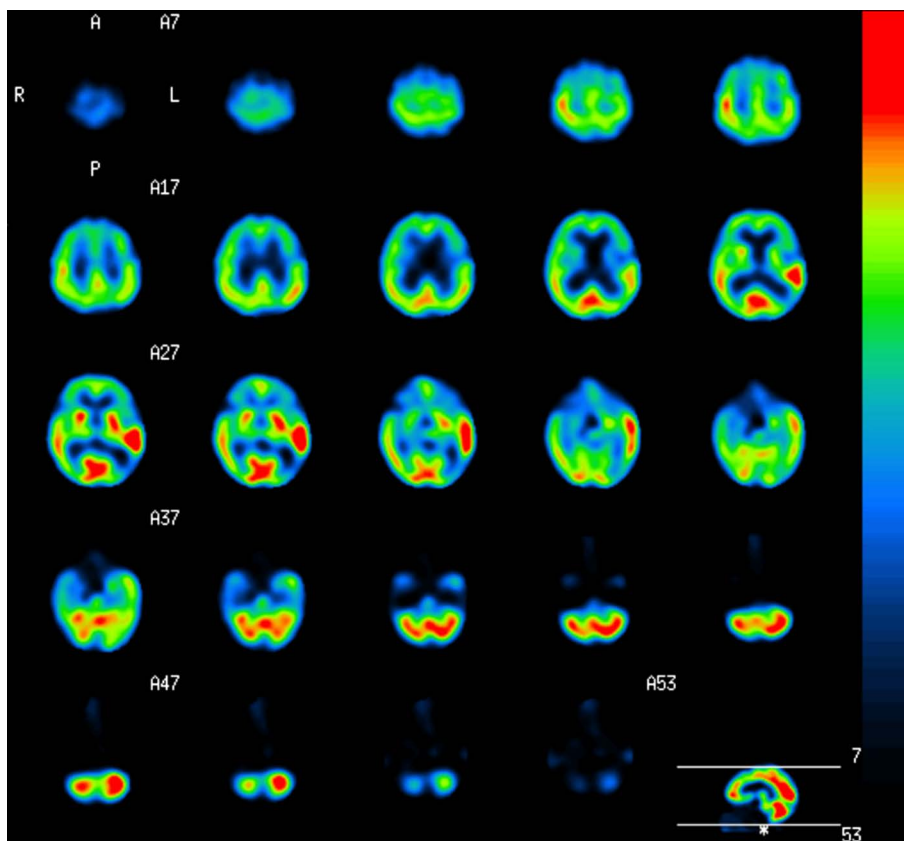


Fig. 3 Tc-99m ECD single-photon emission computed tomography on day 2.  
The images show an increase in cerebral blood flow in the left temporal lobe.

## 考 察

本例は非痙攣性てんかん重積状態にたこつぼ型心筋症を合併した1例である。くも膜下出血にたこつぼ型心筋症を合併することはよく知られているが、痙攣状態にたこつぼ型心筋症を合併した報告例も散見される<sup>3)4)</sup>。Stollbergerらは、たこつぼ型心筋症を合併したてんかん患者36人を検討し、tonic-clonicが13人、generalized 5人、status epilepticus 6人、grand mal 2人、記載なし13人と報告した<sup>5)</sup>。一方で非痙攣性てんかん重積状態とたこつぼ型心筋症の合併例はほとんど報告されていない。検索しえた範囲では、臨床経過から非痙攣性てんかん重積状態が疑われた例にたこつぼ型心筋症を合併した1例が報告されているのみである<sup>6)</sup>。

たこつぼ型心筋症が生じる機序として、カテコラミン産生が亢進することが考えられている。痙攣状態など重症度が高い疾患で血中カテコラミンが上昇し、発症に関与すると考えられる。しかし全身痙攣を伴わない部分発作にも合併しうることが本症例により示唆された。本例では発作時SPECTで左側頭葉と基底核の血流増加を認め、頭部MRI DWIで左視床沈が高信号域であった。これらの所見からニューロサーキットの高度活性化が推測され、それがたこつぼ型心筋症発症と関連した可能性が考えられる。本例では血中カテコラミン

濃度は測定できていないが、今後は合併する脳疾患の病巣分布や重症度の情報を集積解析することで、たこつぼ型心筋症の病因解明につながる可能性がある。

たこつぼ型心筋症の急性期合併症としては、ポンプ失調、左室心尖部血栓形成、左室流出路閉塞、不整脈（torasde de pointes）があり、それぞれ対応が必要である<sup>7)</sup>。痙攣状態にたこつぼ型心筋症を合併した例において突然死の報告がある<sup>4)</sup>。またてんかん発作に伴う突然死の原因として、たこつぼ型心筋症が指摘されており<sup>8)</sup>、たこつぼ型心筋症の早期発見は重要である。通常は胸痛を主訴に発見されることが多いが、本例では経過中胸痛の自覚症状はなかった。非痙攣性てんかん重積状態のために意識障害が遷延したことが影響した可能性がある。本例では心電図モニター波形の変化を認めたことから、たこつぼ型心筋症を診断しえた。また本症例ではたこつぼ型心筋症発症時にBNP値上昇を認めている。城本らは、小脳出血にたこつぼ型心筋症を合併した症例において、BNP高値がたこつぼ型心筋症を疑う契機となりうることを報告している<sup>9)</sup>。脳疾患に合併したたこつぼ型心筋症の早期発見には、心電図やBNPなどの自覚症状以外のモニタリングが重要と考えられる。

今回、我々は非痙攣性てんかん重積状態にたこつぼ型心筋症を合併した1例を経験した。たこつぼ型心筋症の早期発見



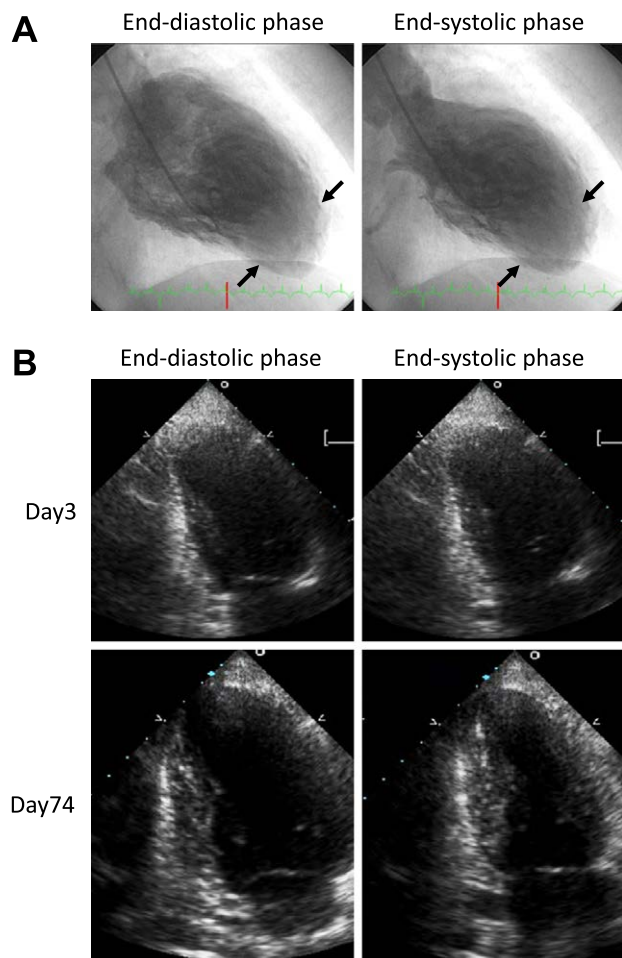


Fig. 4 Left ventricular apical akinesis.

A: Left ventriculography showing apical akinesis (indicated by the arrow) on day 4. B: The transthoracic echocardiogram also revealed apical akinesis on day 3 and improvement of the wall motion on day 74.

のために、非痙攣性てんかん重積状態にも合併することがあることを念頭に置くべきであり、経過中モニター心電図、血漿BNP値に注意することが重要と思われた。

※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) 佐藤 光, 立石博信, 内田俊明ら. 多枝 spasm により特異な左室造影「ツボ型」を示した stunnedmyocardium. 児島和久, 土師一夫, 堀 正二編. 臨床からみた心筋細胞障害—虚血から心不全まで. 1 版, 東京: 科学評論社; 1990. p. 56-64.
- 2) Templin C, Ghadri JR, Diekmann J, et al. Clinical features and outcomes of takotsubo (stress) cardiomyopathy. *N Engl J Med* 2015;373:929-938.
- 3) 加藤宏一, 朝見正宏, 鰐淵 博. てんかん性けいれん重積にたこつぼ型心筋症を併発した1例. *脳神経外科* 2014;42:1039-1043.
- 4) 永井利幸, 唐澤隆明, 真鍋知宏ら. 痙攣重積発作を契機に発症した, たこつぼ心筋障害 (mid ventricular ballooning) の1例. *心臓* 2009;41:1246-1250.
- 5) Stollberger C, Wegner C, Finsterer J. Seizure associated Takotsubo cardiomyopathy. *Epilepsia* 2011;52:e160-e167.
- 6) 福原康介, 福原藍加, 津川 潤ら. 非痙攣性てんかん重積状態を認め, たこつぼ心筋症を合併した1例. *内科* 2015;115:691-694.
- 7) 栗栖 智. たこつぼ心筋症の病態と治療. 臨床医の立場から. *心臓* 2010;42:451-457.
- 8) Finsterer J, Bersano A. Seizure-triggered Takotsubo syndrome rarely causes SUDEP. *Seizure* 2015;31:84-87.
- 9) 城本高志, 芝崎謙作, 木村和美ら. たこつぼ型心筋障害を合併した小脳出血の1例. *臨床神経* 2012;52:778-781.

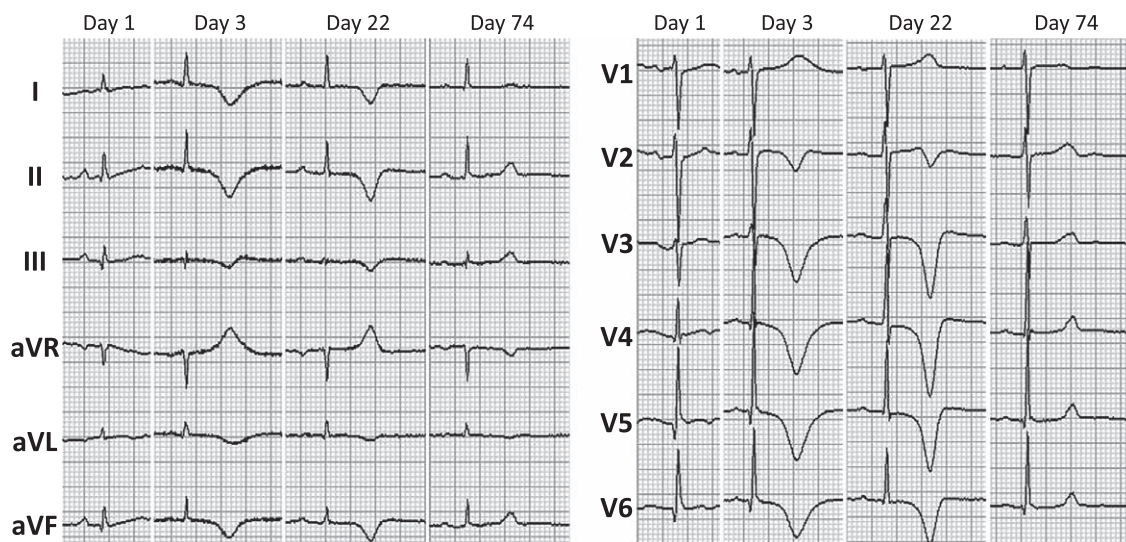


Fig. 5 Temporal change of twelve-lead ECG.

Negative T wave was observed in I, II, aVF, and V2-6 on day 3 and 22. T wave was normalized on day 74.

**Abstract****Non-convulsive status epilepticus with Takotsubo cardiomyopathy: a case report**

Jyunichi Uemura, M.D.<sup>1)</sup>, Yuko Wada, M.D.<sup>1)</sup> and Yoshiki Yagita, M.D.<sup>1)</sup>

<sup>1)</sup>Department of Stroke Medicine, Kawasaki Medical School

A 61-year-old woman was admitted to our hospital for speech disturbance and mild consciousness impairment. Despite the absence of seizures or loss of consciousness, electroencephalographic abnormalities were observed, and the cerebral blood flow scintigraphy revealed an increase in cerebral blood flow in the left temporal lobe. These findings suggested a diagnosis of non-convulsive status epilepticus. On the third day, a twelve-lead electrocardiogram showed a negative T-wave in I, II, aVf, and V2–6. Moreover, a transthoracic echocardiogram revealed left ventricular apical akinesis. However, the coronary angiography showed no evidence of vascular stenotic lesions. We expect the present case report to contribute to the identification of non-convulsive status epilepticus with Takotsubo cardiomyopathy.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2016;56:852-856)

**Key words:** non-convulsive status epilepticus, Takotsubo cardiomyopathy, electroencephalographic abnormalities

---