厚生科学研究費補助金(子ども家庭総合研究事業) 心身症、神経症等の実態把握及び対策に関する研究 分担研究報告書

分担研究 トゥレット症候群の遺伝的素因に関する研究(分担研究者 金生由紀子) 7-B 医療機関におけるトゥレット症候群患者の実態調査

分担研究者 金生由紀子 東京大学医学部附属病院精神神経科 助手

研究要旨

我が国のトゥレット症候群患者の実態を把握するために、 トゥレット症候群やチック症の 患者数、 個々のトゥレット症候群患者のチック症状、随伴症状・障害、発達歴、重症度、遺 伝的要因、 チック症患者・家族の病気や治療への認識、を調査した。

については、17機関の外来から回答が得られ、チック症全体の頻度は、初診、再来共に、3%前後であり、トゥレット症候群の頻度は、再来では2.4%であった。トゥレット症候群やチック症に関心がある専門家の回答とは言え、決して少なくない数と思われた。

については、12機関の外来からトゥレット症候群患者56名(男性48名、女性8名;平均21.0歳)の回答が得られた。発症年齢を含めたチック症状の経過は従来の報告と大差はなかった。随伴症状では、攻撃性と明確に区別するように定義した衝動性が約半数と高率に認められた。胎生期から新生児期に何らかの異常所見が認められたのは28.6%であった。第一度親族では、トゥレット症候群はおらず、チック症全体が8.0%、強迫性障害(OCD)が4.0%であった。周生期障害や遺伝的要因の関与が濃厚な者は必ずしも多くはなかった。

については、5機関の外来から回答が得られ、最も気になる症状に音声チックを挙げた者が過半数であった。原因については、育て方の不適切が約40%で最も高率であることが注目された。育て方の不適切のためにトゥレット症候群が発症したと患者や家族が考えやすいことを十分に念頭において説明・指導することが必要と思われた。

研究協力者

東京学芸大学附属特殊教育研究施設

太田昌孝 教授

静岡県立大学看護学部 永井洋子 教授

都立松沢病院 米田衆介 医員

A. 研究目的

トゥレット症候群は少なくとも 1 万人に5~10人で起こるとされており(Zohar AH, et al, 1999)、その頻度は例えば自閉症の少なくとも1/4と言える。しかし、その注目度は自閉症とは比べ物にならないほど低い。我が国ではトゥレット症候群が誤診されたり見過ごされている可能性がまだ高いと思われる。このような状況において、我が国の医療機関を受診しているトゥレット症候群患者の実態の把握を目指して我々は継続的に調査を行ってきた(金生, 1994; Kano et al,

1998)

本研究では、我が国の医療機関を受診しているトゥレット症候群患者の頻度や主な症状を把握することに加えて、遺伝的素因の関与も含めた本態の解明及び患者や家族の心理教育も含めた治療のあり方の検討につながるような基礎資料を得ることも目指して調査を実施した。

B. 研究方法

調査は大きく3つに分かれており、一定期間(できれば2ヶ月間)に外来診療した患者について、トゥレット症候群やチック症の患者数、個々のトゥレット症候群患者のチック症状、随伴症状・障害、発達歴、重症度、遺伝負因、チック症患者・家族の病気や治療への認識、を調査した。調査用紙をまとめて専門家に郵送し、とについては専門家自

身に回答を依頼して、 については協力の得られた 患者または家族に記入してもらうように依頼した。 症状の定義や重症度評価の目安を含めた詳しいマニ ュアルを添付した。精神科的診断はICD-10に基づく が、合併診断が可能とした。

先述したようにトゥレット症候群やチック症を積極的に診療している専門家が患者の数に見合うほど多くない可能性があるので、回答率を上げることよりも回答数を増やすことに重点を置き、これまでトゥレット研究会の案内を送付してきた専門家を中心に、トゥレット症候群を診療中であったり関心があるとの情報を寄せた専門家にはできるだけ調査を依頼した。

調査用紙は110名の専門家に届いており、17名から何らかの回答が得られた。我々を含めて、 については15機関から、 については12機関から、 については5機関から回答が得られた。

C. 結果

トゥレット症候群やチック症の患者数

小児科6機関、精神科9機関の外来について回答が得られており、回答者の初診に占めるトゥレット症候群の割合が0.6%、チック症全体の割合が2.7%、回答者の再来に占めるでトゥレット症候群の割合が2.4%、チック症全体の割合が3.3%であった。

個々のトゥレット症候群患者の臨床特徴

小児科6機関、精神科6機関から、トゥレット症候群患者56名(男性48名、女性8名;平均21.0歳)について回答が得られた。発症年齢は平均6.9歳、初診時年齢は平均14.6歳であった(表2-1)。チック症状を経過に沿ってみると、発症時には顔面のチックが57.1%と最も多かったが、咳払いなどの単純音声チックも

41.1% に認められていた。初診時には単純音声チックは80.4% と最も高率なチック症状となっていた。初診時と比べると調査時にはチック症状の頻度は全体的にやや低下していた。この傾向は下肢や体幹の運動チック、複雑音声チックでより明確であり、重症な症状が軽快しやすい一方で、顔面のチックや単純音声チックは持続しやすいことが示された。また、調査時には、全身性の激しい動きが持続する"全般性チック"が16.1%に、コプロラリアが10.7%に、むずむずするなどの異常な感覚を感じる感覚チックが14.3%に認められた。

随伴症状・障害では、衝動性を「必ずしも攻撃性を 伴うとは限らず、例えば、質問が終わる前に出し抜 けに答えてしまうとか順番を待つことが困難である のように、よく考えずに行動して危機回避が困難と なることがある」と定義して調査した。衝動性が 48.2% に、攻撃性、不登校がそれぞれ35.7% に、強迫 症状、自傷行為がそれぞれ23.2%に、強迫性障害(OCD) が19.6%に、精神遅滞が10.7%に、多動性障害が8.9% に認められた。重度・最重度の精神遅滞はいなかっ た。発達歴では、胎生期の異常所見が8.9%に、分娩 時の異常所見が21.4%に、新生児期の異常所見が7.1% に認められ、いずれか1つ以上を有するものは28.6% であった。遺伝的要因については、第一度親族176名 中で、トゥレット症候群以外のチック症が8.0%、ト ゥレット症候群が0%、OCDが4.0%、多動性障害が 0.6%、その他の精神障害が6.8%であった。

チック症患者・家族の病気や治療への認識

トゥレット症候群を中心とするチック症患者18名(男性15名、女性3名;平均24.8歳、11~39歳)から回答が得られた。回答者は、患者本人が8名、家族が8名であった。最も気になる症状3つを問う項目には16名が

表 2-1 チック症状の経過

年齢 (平均±SD歳)		<i>発症時</i> 6.9 ± 2.9		<i>初診時</i> 14.6 ± 7.6		<i>調査時</i> 21.0 ± 10.0	
運動チック	顔	32	57.1%	37	66.1%	28	50.0%
	首	13	23.2%	24	42.9%	22	39.3%
	肩	8	14.3%	21	37.5%	16	28.6%
	腕 手	7	12.5%	24	42.9%	24	42.9%
	下肢	2	3.6%	18	32.1%	11	19.6%
	体幹	6	10.7%	19	33.9%	10	17.9%
音声チック	単純音声チック	23	41.1%	45	80.4%	41	73.2%
	複雑音声チック	8	14.3%	16	28.6%	10	17.9%

1つ以上の症状を回答しており、音声チックを挙げた者が10名と多かった。原因について11の選択肢から選ぶ項目では複数回答した者が9名おり、最も多かったのが、育て方の不適切で7名であった。次いで、先天異常(遺伝も含む)で5名、脳機能障害で4名、対人関係のゆがみ、性格、思いあたることなしでそれぞれ3名であった。病気のためと思うかを問う項目では病気だと思うが13名と大多数であったが、病気だと思わないが3名、わからないが2名いた。病名については、未記入または知らないが4名おり、トゥレット症候群患者16名中でその通り回答した者は9名であった。

D. 考察

第一に、頻度については、チック症全体でみると、初診、再来共に、3%前後であった。トゥレット症候群やチック症に関心がある専門家の回答とは言え、決して少なくない数と思われた。また、トゥレット症候群の頻度は、初診では0.6%であるが再来では2.4%となり、チック症全体の中での比重が高くなっていた。これは、チック症の多くが比較的短期間で軽快する一方で慢性化するものも少なくないことを示していると思われた。15機関の専門家の回答というかなり限定されたものであるが、それだけに比較的精密なデータが得られており、チック症の重要性を裏付ける結果と思われた。

第二に、トゥレット症候群患者のチック症状、随 伴症状・障害についてみると、発症年齢を含めたチ ック症状の経過は従来の報告と大差はなかった (Kano et al., 1998)。単純音声チックが発症時から約 40% で認められ、トゥレット症候群では発症時から音 声チックを有する場合が少なくないと思われた。一 過性チック障害の追跡調査でトゥレット症候群に移 行した者は発症時から音声チックを認めたという報 告(Shapiro et al., 1988) もあり、発症時の音声チックが 予後と関連するかどうかを留意しつつ、他の臨床特 徴との関連を検討することが必要と思われた。また、 単純音声チックは初診時には約80%になっており、こ のために受診に至る場合も少なくないと思われた。 さらに、チックは、頭側から尾側へ、単純チックか ら複雑チックへという方向で発展するのはよく知ら れているが、軽快していく場合には、尾側から、複 雑チックから消失する傾向にあると思われた。

随伴症状では、攻撃性と明確に区別するように定

義した衝動性が約半数と高率に認められた。これは、多動性障害が10%に満たないのと比べると、かなりの開きであった。衝動性は比較的厳密に定義したのであるが、チックのために落ち着かなく見えることなどを含んでいる可能性もあり、必ずしも均質とは限らない。しかしながら、トゥレット症候群の行動特徴をよくとらえていると思われ、他の臨床特徴との関連を検討することによって、トゥレット症候群の理解を深める上で有用な所見が得られるかもしれない。また、自傷行為が20%以上に認められ、比較的長期間の通院を要するような患者では無視できない問題と思われた。

第三に、トゥレット症候群の本態と関わる可能性のある周生期障害と遺伝的要因についてみると、胎生期から新生児期に何らかの異常所見が認められたのは28.6%であった。これは重症度が異なるものを含む集計であり、我が国の一般人口で自然分娩以外の割合が16.6%、前・早期破水の割合が14.5%という報告がある(菅原卓、1987)ことも考え合わせると、周生期障害の比重は全体としては高くないと思われた。

また、第一度親族では、トゥレット症候群はおらず、チック症全体でも8.0%であった。トゥレット症候群と共通した"脆弱性"の表現型と仮説されているOCDも4.0%であった。これらは、米英での報告と比べて低率であり、我が国の精神科外来にて半構造化面接で遺伝的要因を調査した結果と近かった(金生ら、1998)。少なくとも比較的長期間の通院治療を要するような患者では遺伝的要因が濃厚な者は少ない可能性があると思われた。

第四に、チック症患者・家族の病気への認識についてみると、最も気になる症状に音声チックを挙げた者が過半数であり、心理・適応面への影響を含めて音声チックがいかに大きな問題かが確認された。原因については、育て方の不適切が約40%で最も高率であることが注目された。トゥレット症候群は個体側の生物学的要因を基盤として種々の環境因との関係で発症するとの認識が現在では一般的であり(Leckman et al., 1997)、その線に沿った説明が主治医からなされていると思われるのとは、かなり異なる結果であった。この調査の対象患者の平均年齢が約25歳と高く、回答者の半数が家族であることがあったり表別と過去に説明されたことがあったり、育て方の不適切と過去に説明されたことがあったりするためもあるかと思われた。

それらを考慮に入れても決して少ない数字ではなく、 育て方の不適切のために発症したと患者や家族が考 えやすいことを十分に念頭において説明・指導する ことが必要と思われた。

本研究は、20に満たない機関からの回答に基づくとは言え、北海道から九州に広く分布する専門家が参加しており、我が国のトゥレット症候群の実態をある程度把握できたと考えている。今後は、さらに解析を進めて、トゥレット症候群の理解と治療を進める上で有用な所見を得たいと考えている。

E. 結論

我が国のトゥレット症候群患者の実態を把握するために、 トゥレット症候群やチック症の患者数、 個々のトゥレット症候群患者の臨床特徴、 チック症患者・家族の病気や治療への認識、を調査した。

については、チック症全体の頻度は、初診、再来共に、3%前後であり、トゥレット症候群の頻度は、再来では2.4%であった。トゥレット症候群やチック症に関心がある専門家の回答とは言え、決して少なくない数と思われた。

については、トゥレット症候群患者56名の回答が得られ、発症年齢を含めたチック症状の経過は従来の報告と大差はなかった。随伴症状では、攻撃性と明確に区別するように定義した衝動性が約半数と高率に認められた。周生期障害や遺伝的要因の関与が濃厚な者は必ずしも多くはなかった。

については、最も気になる症状に音声チックを 挙げた者が過半数であった。原因については、育て 方の不適切が約40%で最も高率であり、育て方の不適 切のためにトゥレット症候群が発症したと患者や家 族が考えやすいことを十分に念頭において説明・指 導することが必要と思われた。

今後は、周生期障害や遺伝的要因を含めた臨床特徴の相互の関連について検討を進めて、重症度や特徴的な症状と関連する要因を明らかにしたい。これによって予後を予測して治療を組み立てたり、表現型を整理して本態に迫ったりする糸口にできればと考えている。また、チック症患者・家族の治療に関連する自由記載での意見の整理を進めて、患者側の観点を含めて治療のあり方の検討を深めたい。さらに、可能であれば、症例数を増やすと共に、臨床例で対照をとって比較検討することを試みたい。以上の作業を進めつつ、全国的な患者データベース作りを視野

に入れて、最低限必要な調査項目を明らかにしてい きたい。

盾文献

金生由紀子、太田昌孝、永井洋子:多数の医療機関におけるトゥレット症候群の実態 - 第2次調査の概要 - . 第1回トゥレット研究会報告集: 2-3, 27-42, 1995.

Kano Y, Ohta M, Nagai Y: Clinical characteristics of Tourette syndrome. Psychiatry and Clinical Neurosciences, 52: 51-57, 1998.

Kano Y, Ohta M, Nagai Y: Tourette syndrome in Japan: A nationwide questionnaire survey of psychiatrists and pediatricians. Psychiatry and Clinical Neurosciences, 52: 407-411, 1998.

金生由紀子、太田昌孝、永井洋子: 我が国のトゥレット障害の遺伝学的要因に関する臨床的検討. 脳と精神の医学, 9(3): 267-275, 1998.

Leckman JF, Dolnansky ES, Hardin HT, et al.: Perinatal factors in the expression of Tourette's syndrome: An exploratory study. J Am Acad Child Adolsec Psychiatry, 29: 220-226, 1989.

Leckman JF, Peterson BS, Anderson GM, et al.: Pathogenesis of Tourette's syndrome. J Child Psychol Psychiat 38: 119-142, 1997.

Shapiro AK, Shapiro ES, Young JG, et al.: Gilles de la Tourette Syndrome, Second edition. Raven Press, New York, 1988.

菅原卓: 勤労婦人の妊娠・分娩に関する疫学的研究. 北海道医学雑誌, 62: 605-615, 1987.

Zohar AH, Apter A, King RA, et al: Epidemiological studies. Tourette's syndrome: Tics, obsessions, compulsions. John Wieley & Sons, New York, 177-193, 1999.

G.研究発表

1. 論文発表

金生由紀子、太田昌孝、永井洋子:多動及び強迫の合併からみたトゥレット障害の臨床特徴について.臨床精神医学(投稿中)

金生由紀子: 小児精神医療における多職種チームア プローチの実際. 臨床精神医学講座S5 精神医療にお けるチームアプローチ,中山書店, 東京, 59-68, 2000.

金生由紀子: ADHD(注意欠陥多動症候群). 青年心理

学事典, 福山書店(印刷中)

金生由紀子: チック、心因性咳嗽. 今日の小児治療指針, 医学書院(印刷中)

2. 学会発表

Kano Y, Ohta M, Nagai Y: Clinical characteristics of Tourette syndrome patients with and without hyperkinetic disorder and obsessive-compulsive symptoms. 2nd Congress, Asian Association for Child and Adolescent Psychiatry and Allied Professions, 1999, May.

金生由紀子、太田昌孝、永井洋子: トゥレット症候群と自閉症圏障害における素因の関与の検討 強迫性を中心に . 第21回日本生物学的精神医学会, 1999年4月