

症の家族におけるOCDの頻度については、高いとの報告もあれば(Bolton et al., 1998)、特に高くないとの報告(Piven et al., 1999)もあるが、このような観点からの研究はまだ少なく、貴重な結果と言えよう。

最後に、本研究の特徴と限界について述べる。日本においてトゥレット症候群患者及び自閉症圏障害患者の父母について一定の評価バッテリーを用いてチックや強迫性の評価を行って健常対照と比較したということは初めての試みで評価に値しよう。しかし、対象数が少なく、特に、強迫症状を示すトゥレット症候群患者が4名しかいないために第3の仮説の検討が十分にできとは言えない。また、対象の選択についてみると、研究の趣旨を理解して自己評価尺度への回答に協力してくれたことから、精神面での問題がより少ない父母に傾いている可能性がある。さらに、評価の方法についてみると、自己評価尺度のみを使用しており、直接面接に基づく評価を行っていない点が不十分と言える。

トゥレット症候群においても自閉症圏障害においても、強迫性の他に衝動性や攻撃性がしばしば適応を妨げると共に、強迫症状が他者を巻き込んだり破壊的行動という形をとったりすることも稀ではない。その一方で、対人関係については両者は大きく異なっている。本研究の結果では患者の強迫(様)症状によって父母の評価に差はなかったが、対象を追加すると共に、患者のどのような症状に着目したらよいかの検討を続けることも必要と思われた。

トゥレット症候群と自閉症圏障害における共通点と相違点を踏まえて、強迫性の素因の関与について比較・検討を続けることは両者の本態の解明の上で有意義と思われた。

E. 結論

トゥレット症候群と自閉症圏障害に深く関わる強迫性に焦点を当てて両者における素因の関与を検討するため、患者の両親を対象として、3つの自己評価尺度を用いてチック、強迫症状、不安を評価して、健常対照と比較検討した。

これらの評価尺度における頻度や得点では、トゥレット症候群患者の父母、自閉症圏障害患者の父母、健常対照の3群間で有意差は認められなかった。しかし、強迫症状を評価する Maudsley Obsessional Compulsive Inventory (MOCI)の得点分布では、自閉症圏障害患者の父母では他の2群と異なり二峰性の

分布を示した。MOCIの総得点及び確認得点が健常対照の平均+1SD以上の者の割合をみると、自閉症圏障害患者の父母では健常対照よりも有意に多い傾向であったり、有意に多かった。トゥレット症候群患者の父母でも自閉症圏障害患者の父母でも、患者の強迫(様)症状によって父母のチック、強迫症状、不安に差はなかった。以上より、トゥレット症候群の父母で強迫性が強いとは言えなかった。トゥレット症候群か慢性チックかOCDのいずれかを発症する脆弱性が常染色体優性遺伝するという従来の仮説の再検討が必要と思われた。同時に、自閉症圏障害患者の父母にはMOCIの確認を中心とした強迫性がやや強い一群がいることが認められた。自閉症圏障害患者の一部で強迫性の素因が関与している可能性を示唆しており、きわめて興味深いと思われた。本研究の結果では患者の強迫(様)症状によって父母の評価に差はなかったが、対象を追加すると共に、患者のどのような症状に着目したらよいかの検討を続けることも必要と思われた。

F. 文献

American Academy of Child & Adolescent Psychiatry: Practice parameters for the assessment and treatment of children and adolescents with obsessive-compulsive disorder, *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry*, 37(10 Supplement): 27S-45S, 1998.

Bailey, A, Palferman, S, Heavey, L, et al.: Autism: The phenotype in relatives. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 28: 369-392, 1998.

Baron-Cohen S: Do autistic children have obsessions and compulsions? *Br J Clin Psychol*. 28: 193-200, 1989.

Black DW, Noyes RJr, Goldstein RB, et al.: A family study of obsessive-compulsive disorder. *Arch Gen Psychiatry*, 49: 362-368, 1992.

Bolton PF, Pickles A, Murphy M, et al.: Autism, affective and other psychiatric disorders: Patterns of familial aggregation. *Psychological Medicine*, 28: 385-395, 1998.

Eapen V, Robertson MM, Alsobrook II JP, et al.: Obsessive compulsive symptoms in Gilles de la Tourette syndrome and obsessive compulsive disorder: Differences by diagnosis and family history. *Am J Med Genet*, 74: 432-438, 1997.

Hodgson RJ & Rachman S: Obsessional-compulsive complaints. *Behav Res & Therapy*, 15: 389-395, 1977.

Holzer JC, Goodman WK, McDougle CJ, et al.: Obsessive-compulsive disorder with and without a chronic tic disorder: A comparison of symptoms in 70 patients. *Br J Psychiatry* 164: 469-473, 1994.

Kano Y, Ohta M, Nagai Y: Differences in clinical characteristics between Tourette syndrome patients with and without generalized tics or coprolalia. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*, 51: 357-361, 1997.

McDougle CJ, Kresch LE, Goodman WK, et al.: A case-controlled study of repetitive thoughts and behavior in adults with autistic disorder and obsessive-compulsive disorder. *Am J Psychiatry* 152: 772-777, 1995.

水口公信、下仲順子、中里克治: 日本版STAI使用手引. 三京書房, 京都, 1991.

Pauls DL, Raymond CL, Stevenson JM, et al: A family study of Gilles de la Tourette syndrome, *Am J Hum Genet*, 48: 154-163, 1991.

Pauls DL, Alsobrook II JP, Gelemer J, et al.: Genetic vulnerability. Tourette's syndrome: Tics, obsessions, compulsions. John Wiley & Sons, New York, 194-212, 1999.

Piven, J & Palmer P: Psychiatric disorder and the broad autism phenotype: Evidence from a family study of multiple-incidence autism families. *Am J Psychiatry*, 156: 557-563, 1999.

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

Spielberger CD, Gorsuch RL and Lushene RE: STAI manual. Consulting Psychologist Press, 1970.

吉田充孝、切池信夫、永田利彦ら: 強迫性障害に対する Maudsley Obsessional Compulsive Inventory (MOCI)邦訳版の有用性について. *精神医学*, 37: 291-296, 1995.

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 トウ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ウ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

我が国のトウレット症候群患者の実態を把握するために、①トウレット症候群やチック症の患者数、②個々のトウ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、③チック症患者・家族の病気や治療への認識、を調査した。

①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、トウレット症候群の頻度は、再来では2.4%であった。トウ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。

②については、12機関の外来からトウレット症候群患者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と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、トウ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。

③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ウ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

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ウ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。

A. 研究目的

トウ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。我が国ではトウ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ウ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;

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、①トウレット症候群やチック症の患者数、②個々のトウ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、③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、①と②については専門家自

身に回答を依頼して、③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ため、回答率を上げること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つ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、①については15機関から、②については12機関から、③については5機関から回答が得られた。

C. 結果

①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。

②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。

③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

表2-1 チック症状の経過

年齢(平均±SD歳)	発症時		初診時		調査時	
	人数	割合	人数	割合	人数	割合
運動チック	32	57.1%	37	66.1%	28	50.0%
顔	13	23.2%	24	42.9%	22	39.3%
首	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	23	41.1%	45	80.4%	41	73.2%
単純音声チック	8	14.3%	16	28.6%	10	17.9%
複雑音声チック						

名が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、思いあたることなどでそれぞれ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った。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から、育て方の不適切と過去に説明されたことがあったり、

長期間治療に至らないのは自らのせいと家族が認識する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、①トゥレット症候群やチック症の患者数、②個々のトゥレット症候群患者の臨床特徴、③チック症患者・家族の病気や治療への認識、を調査した。

①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、決して少ない数と思われた。

②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。

③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。

F. 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, Dolansky ES, Hardin HT, et al.: Perinatal factors in the expression of Tourette's syndrome: An exploratory study. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry*, 29: 220-226, 1989.

Leckman JF, Peterson BS, Anderson GM, et al.: Pathogenesis of Tourette's syndrome. *J Child Psychol Psychiatr* 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 Wiley & 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: トウ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