

迫性と衝動性を有する併存症として、怒り発作とPDDを記載している。岡田(2008)はTDとPDDあるいはADHDの併存について、これらの併存には神経生物学的な基盤に共通性があると述べている。

この2つの障害の頻度についての報告では、トウレット障害は報告により幅があるもののおよそ0.1～0.2%（金生1994, 2004）、PDDは1～2%（杉山2007）と考えられている。

また、この2つの障害については併存することが知られており、TDでのPDD併存率は1～9%、PDDのTD併存率は2.6～50%（桑原ら、2006）とされているが、併存についての報告は多くはない。また金生(2008a)は、自閉性障害の主徴のひとつである、行動、興味および活動の限定され、反復的で常同的な様式については、TDとPDDでは共通性が高く、PDD小児にTDが発症すると強迫性と衝動性が高まり、自傷や他害などの攻撃行動を生じやすく適応が悪くなるという。

しかしわれわれの小児科での臨床経験からは、チックを主訴に受診したTD小児におけるPDDの併存はそれほど高率ではなく臨床像も典型的ではなく、行動上の問題で受診したPDD小児のTDは軽症で服薬を必要とすることは少ないという印象があった。また両群とも適応については比較的良好と感じていた。また少数例では初診時ではなく、その後の経過中に他の障害に気づくことがあった。

この研究ではこの2つの障害が併存した症例を、チックを主訴にした群と、行動上の問題を主訴にした群の2群に分けて、臨床での印象の妥当性について検討した。

II. 方 法

2004年1月～2008年12月の5年間に、東京医科大学病院小児科をチックを主訴に受診したTD

症例99例のうち、PDDの併存が認められた13例と、行動上の問題を主訴に受診したPDD症例294例のうち、TD併存が認められた20例を対象とした。

TDおよびPDDの診断はDSM-IV-TR (American Psychiatric association, 2004ab) によって行い、併存症の確認については、初診時に全患者に既往や併存のチック症状、まばたき、頭を振る、咳払いなどの癖の有無を問診し、行動の特徴については自閉性障害の12項目について有無を問診した。チック症状の出現部位は、山中ら(2005)の分類を一部変更し、運動性チックは顔面、頸部、肩、上肢、軀幹、下肢、全身の7部位に、音声チックは鼻症状、咳払い、単音節の発声、複雑性音声チック、汚言の5種類に分類した。

TDの重症度の評価には表1に示したShapiroのTourette症候群重症度尺度(Shapiro, Young et al, 1988abc)の太田らによる日本語訳(太田、1989)を用いた。重症度は診療を担当した2人の小児科医が診療録の記載から、保護者が経過中の最強時と考えた時点で後方視的に合議により評価した。診療録には受診ごとに初発症状から診療時までにみられた全てのチックについて、診療時点での有無とその程度が記載されていた。また学校で友人にチックに関して何か言われるか、教師が気づいているか、何か言われるか、については本人から聴取、あるいは母親に担任教師との個人面談のときに確認してもらい、外出時に他人から奇異な目で見られるか、あるいはチックのことを注意されるか、家庭および学校生活を含む日常生活での支障はないかについては母親あるいは本人に有無を確認し、問題があれば診療録に記載されていた。

幼児期から学童期前半では、患児自身がチックが出ていても気づかないことがあるが、その場合は家庭では母親の、学校では担任教師の評

表1 ShapiroのTourette症候群重症度尺度

①チックを他人に気づかれるか
0 チックなし
0.5 チックは頻度が少ないかあるいは軽度であり、雇主、教師、友人、見知らぬ人には気づかれない。しかし、家族のだれかやごく親しい友人が気づくことがある。公共の場では症状は非常に減少またはコントロールされている。
1 チックはほとんどの友人に気づかれるし、時々は雇主、教師、見知らぬ人に気づかれることもある
2 チックはほとんどの雇主、教師、見知らぬ人に気づかれる。
3 チックは全ての人に気づかれる。
②チックについて何か言われたり、物珍しがられるか
0 チックはない。またはチックは頻度が少なく軽度であり、雇主、教師、友人からチックについて何か言われたり、物珍しがされることはない。しかし、親しい家族の一員には明白かもしれない。
0.5 チックはいくらか頻度が低く明白なので、誰からチックについて何か言われたり、物珍しがされることがありうる
1 チックは頻度が多く明白なので、誰からもチックについて何か言われたり、物珍しがられる。
③患者は奇妙だと思われているか
0 チックはないか、または頻度が少なく軽度であり、他の人が患者が奇妙だとは思わない。
1 チックはいくらか頻度が多く、びっくりするようなものであり、患者の外観を歪めるので、それをみて患者が奇妙だと思う人もいる。
2 チックは頻度が多く、びっくりするようなものであり、患者の外観を歪めるので、それをみてほとんどの人が患者を奇妙だと思う。
④チックは活動を妨げるか
0 チックはない。あるいはチックはあるが、学業、職業、社会的、心理活動的または調和を妨げない。
1 チックは時々、あるいはいくらか学業、職業、社会的、心理的活動または調和を妨げる。
2 チックはしばしば日常的に、あるいはいつも学業、職業、社会的、心理的活動を妨げる。
⑤法的に無能力か、家に拘束されているか、あるいは入院中か
0 そのようなことはない。
1 法的に無能力である、家に拘束されている、あるいは入院中である。

評点の合計を、0,>0~<1,1~<2,2~<4,4~<6,6~<8,>8~9の7つの範囲に分け、それぞれの統合重症度評価を、0(ない)、1(きわめて軽度)、2(軽度)、3(中度)、4(著明)、5(重度)、6(きわめて重度)とする。

価を用いた。また年長児では本人にも状況を尋ねた。

知能検査にはWISC-III(1988)、統計学的検討にはMann-Whitney検定、カイ二乗検定を用いた。

III. 結 果

1. 対象背景

(1)症例数、性別

TD症例99例のうち、13例、13.1%（以下TD群）にPDDの併存が認められ、PDD症例294例では、20例、6.8%（以下PDD群）にTDの併存

が認められた。

性別はTD症例99例では男児75例、女児24例のうち、PDD併存13例では男児11例（男児の14.7%）、女児2例（女児の8.3%）であった。PDD症例294例では、男児245例、女児49例のうち、TD併存20例では男児のみ20例（男児の8.2%）で、女児の併存はみられなかった。TD群、PDD群を合わせると、33例中31例、93.9%が男児であった（表2）。

(2) PDDの下位分類

併存例33例でのPDDの下位分類は、TD群で

表2 対象の性別

	TD群	PDD群
男児	11/75 (14.7%)	20/245 (8.2%)
女児	2/24 (8.3%)	0/49 (0%)
合計	13/99 (13.1%)	20/294 (6.8%)

は1例が自閉性障害で、他は全て特定不能のPDD (PDDNOS)であった。PDD群では自閉性障害が5例、アスペルガー障害が2例、その他13例はPDDNOSであった。

(3)併存が確認された時期

併存が確認された時期は、TD群13例中11例では初診の問診時であった。以下に代表的な一例を示す。

8歳男児。3歳の時にまばたきで発症。5歳で頭を後屈させる、7歳で唾を吐くなどの運動性チックとアッパッという発声と咳払いなどの音声チックを認めた。音声チックは学校でも出現し友だちからチックのことをいわれたりまねされたりすることがあり、担任教師も気づいていた。初診時の問診で、相手がいやがることを言つていやられるなど情緒的交流の難しさがあること、会話が奇妙な言い回しになる、自分の興味のあることだけ話し続ける、コマーシャルの反復、ごっこ遊びがないなどの意思伝達の質的障害も認めた。WISC-ⅢでFIQ91であった。これよりトゥレット障害と高機能広汎性発達障害(PDDNOS)の併存と考えた。

他の2例は初診後の経過中に保護者が情緒的交流の難しさに気づいて併存が確認されていた。

PDD群20例では、17例は初診時にTDの併存が確認された。以下に一例を示す。

受診時9歳男児。同級生との情緒的交流の難しさと学習面の遅れを主訴に受診。問診で幼児期には視線が合いにくく、友だちを作ろうとせず一人遊びが多く、ごっこ遊びが無かったこと、学童期になってもほかの子がいやがってい

ることに気づかないことが多く、会話は自分の興味のあることだけ話続けることなどが確認された。また問診で幼児期よりチックがあり、4歳でくり返し鼻を吸う、5歳で頭をふる、6歳で咳払い、まばたき、眼球を回転させる、8歳で口を歪める、10歳で臭いをかぐなどのチックを認めていた。受診時は咳払いとまばたきが目立つが生活に困ることはなく、友だちにチックのことをいわれることもなかった。WISC-ⅢではFIQ78であった。これより高機能広汎性発達障害(PDDNOS)とトゥレット障害の併存と考えた。

他の3例中1例は初診時に運動性チック1種と音声チック1種がみられており、その3カ月後には運動性チックが2種になりトゥレット障害併存と確認された。他の1例は経過中に唾を吐く癖で相談を受け、再度問診して以前母親が癖と考えていた発声と動作がチックであったことが判明し、トゥレット障害の併存が確認され、1例は受診8カ月後にチックが発症し、その後トゥレット障害と診断されていた。

(4)知能

知能検査はWISC-ⅢがTD群は8例、PDD群19例に行われていた。言語性IQ (VIQ)は、TD群では平均 101.6 ± 13.5 、PDD群では 97.6 ± 17.3 で有意差は認められなかった。動作性IQ (PIQ)は、TD群では 92.6 ± 15.7 、PDD群では 92.8 ± 12.8 で、有意差は認められなかった。全検査IQ (FIQ)は、TD群は 97.1 ± 15.1 、PDD群は 94.7 ± 14.3 で有意差はなかった。軽度知的障害はTD群ではみられず、PDD群18例中2例でみられた。

2. チック

(1)チック症状の発症年齢、初診時年齢

チック症状の発症年齢は、TD群では 4.9 ± 1.7 歳(3~8歳)、PDD群では 6.0 ± 2.1 歳(3~11歳)であり、2群間に有意差はみられなかった。また初診時年齢も、TD群は 9.3 ± 2.4 歳(6~13歳)、PDD群は 9.6 ± 2.5 歳(5~14歳)で、有意

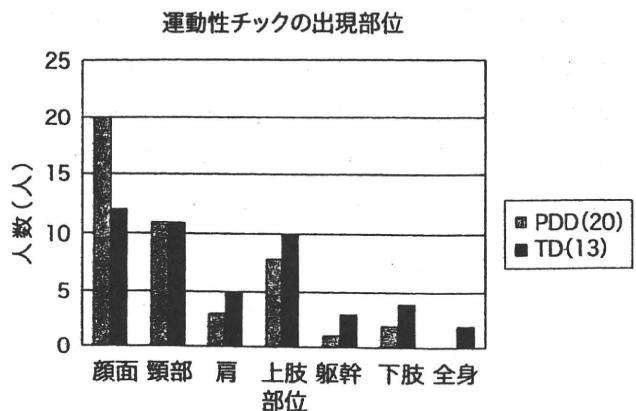


図1-a 運動性チック症状の比較

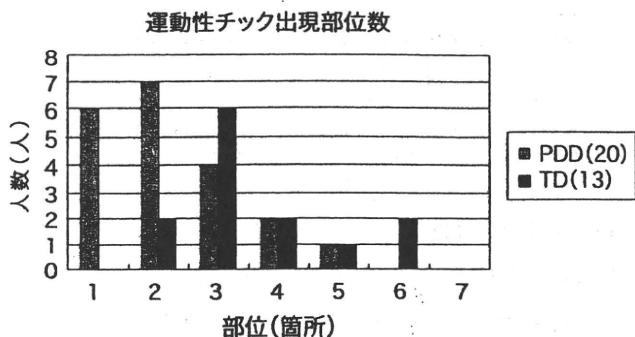


図1-b 運動性チック症状の比較

表3 チック症状の比較

	TD群	PDD群	
運動性チック(出現部位数)	3.6 ± 1.3	2.3 ± 1.2	$p < 0.01$
音声チック(種類数)	1.7 ± 0.9	1.4 ± 0.7	ns

平均 \pm 標準偏差 ns : no significant Mann-Whitney 's test

差は認められなかった。

(2) 運動性チック

運動性チックの出現部位は、TD群、PDD群共に顔面が最も多く、次いで頸部が多かった。肩から上肢、軀幹、下肢の4部位では、チックはTD群に多くみられたが、有意差はなかった。全身のチックはTD群の2例のみに認められた(図1a)。

経過中の出現部位数は、TD群では 3.6 ± 1.3 部位(2~6部位)、PDD群では 2.3 ± 1.2 部位(1~5部位)で、有意にTD群で多かった。(P<0.01)(表3)またTD群では全て2部位以上であったが、PDD群では1部位のみにみられたものが6例あった。(図1b)これらの2群の併存例では7部位全てにチックを認めた症例はなかった。

(3) 音声チック

音声チックの種類では、TD群、PDD群共に咳払いが最も多く、次いで単音節の発声が多くみられた。またTD群、PDD群それぞれに1例

汚言が認められた(図2a)。鼻症状、咳払い、単音節の発声は、TD群で少なく、複雑性音声チックはTD群で多かったが有意差はなかった。

音声チックの種類数は、TD群では 1.7 ± 0.9 種類、PDD群では 1.4 ± 0.7 種類で、有意差は認めなかった(表3)。また、チックの種類数別の2群の比較でも有意差は認めなかった(図2b)。

3. 重症度評価

Shapiroのトゥレット症候群重症度尺度を用いて重症度を評価した。

各項目の評点については、①他人に気づかれるか、②何か言われたり物珍しがられるか、③奇妙だと思われているか、④チックは活動を妨げるか、については統計的に有意差(p<0.01)を認め、いずれもTD群が高い値であった。⑤法的に無能力か、家に拘束されているか、入院中か、の項目に該当する症例は2群共に存在しなかった(表4)。

項目①では、TD群では症例間で0.5~3点と

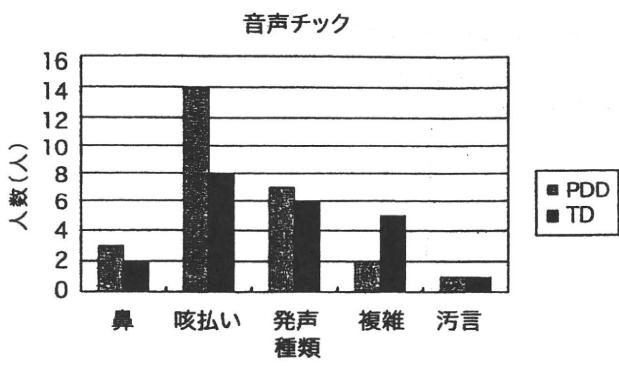


図2-a 音声チック症状の比較

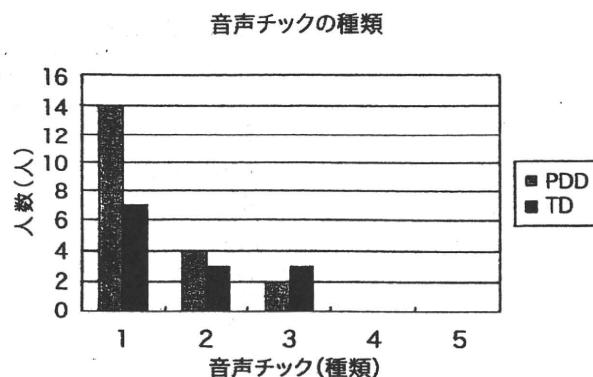


図2-b 音声チック症状の比較

表4 Shapiro 重症度尺度による比較

	PDD群	TD群	
項目①他人に気づかれるか	1.0 ± 0.8	0.5 ± 0.1	$p < 0.01$
項目②物珍しがられるか	0.4 ± 0.4	0.03 ± 0.1	$p < 0.01$
項目③奇妙だと思われるか	0.5 ± 0.7	0.03 ± 0.1	$p < 0.01$
項目④活動を妨げるか	0.7 ± 0.7	0.08 ± 0.3	$p < 0.01$
項目⑤法的に無能か 拘束されているか	0	0	ns
Shapiro 重症度尺度評価点の合計	2.5 ± 2.3	0.7 ± 0.7	$p < 0.01$
Shapiro 重症度尺度総合評価	2.5 ± 1.4 (中度)	1.1 ± 0.4 (軽度)	$p < 0.01$

平均 \pm 標準偏差 ns : no significant Mann-Whitney 's test

多様であったが、PDD群では、20例中19例が0.5点、1例が1点と評価された。項目②③④について、加点に該当する症例は、PDD群では1例のみで、その他の症例では①以外の項目はすべて0点であった。なお、項目①が1点の症例と他の項目の加点対象となった症例は同一であった。TD群ではそれぞれの症例が各項目について0～2点と評価された。

項目①～⑤の評点の合計の平均は、TD群で 2.5 ± 2.3 点(0.5～8点)、PDD群で 0.7 ± 0.7 点(0.5～3.5点)であり、2群間で有意差($p < 0.01$)を認めた。

総合重症度評価はTD群では平均 2.5 ± 1.4 、

PDD群では 1.1 ± 0.5 で、有意差($p < 0.01$)を認めた(表4)。またTD群では極めて軽度から重度まで広く分布したが、PDD群では20例中19例が極めて軽度と評価された。最も重症の症例は、TD群では重症度5(重度)を2例認め、PDD群では重症度3(中度)を1例認めた(表5)。

4. 服薬の有無

TD群では13例中5例、PDD群では20例中1例がチックにより日常生活に支障をきたし、ハロペリドール、リスペリドン、ピモジドなどを服薬していたが2群間に有意差はなかった。

服薬を必要とした6症例については、評点の合計が3以上、総合重症度評価では、中度が4

表5 ShapiroのTourette症候群重症度尺度総合評価

	TD群	PDD群
ない	0	0
極めて軽度	4	19
軽度	2	0
中度	5	1
著明	0	0
重度	2	0
合計	13	20
(人)		

表6 服薬症例

	I	II	III	IV	V	i
M合計	3	5	3	3	6	5
V合計	3	2	1	1	3	3
項目①	3	1	0.5	1	2	1
②	1	0.5	0.5	1	1	0.5
③	2	0.5	0	0.5	2	0.5
④	2	1	2	1	1	1.5
⑤	0	0	0	0	0	0
評点合計	8	3	3	3.5	6	3.5
総合評価	5	3	3	3	5	3
使用薬剤	H	R	R	R	P	H・P

M：運動性チック（部位） V：音声チック（種類）

Shapiro重症度尺度総合評価：0ない、1極めて軽度、2軽度、3中度、
4著明、5重度、6極めて重度

H：ハロペリドール R：リスペリドン P：ピモジド

例、重度が2例であった（表6）。

5. 他の併存症

ADHDの診断基準を満たし、家庭や学校での生活に支障をきたして何らかの対応や服薬が必要になった症例はいなかった。しかし診断基準の項目を問診すると、TD群13例中8例、61.5%、PDD群20例中11例、55%で項目数は基準を満たしていた。下位分類では、TD群8例中不注意型が5例、62.5%，PDD群では11例中9例、81.8%が不注意型であった。

強迫性障害が疑われた症例はTD群で1例、選択性缄默の併存が認められたのはPDD群で1例であった。不登校はTD群13例中2例、15.4%，PDD群20例中3例、15.0%でみられた。自傷、他害などの攻撃行動を認めた症例はなかった。

IV. 考 察

1. 性別

併存例の性別は、TD群では男児の14.7%，女児の8.3%，PDD群では男児の13.8%のみで女児

表7 併存症

	TD群	PDD群
ADHD	0 (8例 61.5%)	0 (11例 55%)
強迫性障害	疑1	0
選択性減黙	0	1
不登校	2 (15.4%)	3 (15%)

の併存は見られなかった。TD群、PDD群を合わせると、併存例の94%が男児であり、男児の割合が著しく高率であった。

この2つの障害においてはいずれも男児の割合が高いが、何らかの生物学的、遺伝学的背景が関係して男児の併存がより高率になっている可能性がある。また経過を見ていく時には、男児での併存の有無に注意する必要があると思われた。

2. TDとPDDの併存

本研究の結果からは、TD症例では13.1%にPDDの併存がみられ、PDD症例では6.8%にTDの併存が認められていた。

桑原ら(2006)は、TDでのPDD併存は1~9%と記載している。金生(2008a)は、TDの自験例で自閉性障害またはアスペルガー障害が確定できず知的な遅れを伴わないTD患者44例について詳細な評価を行い、4例、9.1%がPDDであると判明したという。この44例は本研究でのTD群に類似した症例と推測されるが、われわれの初診後の経過中にPDD併存が確認されたPDDの症状が比較的軽度と思われる2例を除くと99例中11例、11.1%となり、併存率は極めて近似していた。

われわれの結果は今までの報告と比較してTD群でのPDD併存率がやや高いが、これは全ての症例で初診時に自閉性障害の診断基準12項目を確認したことと、情緒的交流の難しさが軽度の症例が含まれて併存率が高くなった可能性がある。

またPDDのTD併存については、桑原ら(2006)は今までの報告では2.6~50%と記載している。Burdら(1978)は米国での疫学研究で、PDD小児59例中12例、20.3%でTDの併存があったという。また、Baron-Cohenら(1999)は、自閉症学校での調査を行い、自閉性障害とその近縁のアスペルガー障害などを含む自閉症圏障害の生徒447例のうち、19例でTDを併発し、その他の10例でTD併発が疑われたという。つまり明らかなTD併存は4.3%、疑いも含めると6.5%となる。本邦でも併存については、Kanoら(1988)の精神科領域で自閉症患者76例中2例、2.6%，という報告や、PDD患者166例中1例、0.6%（金生、1998）という併存率の報告がある。

われわれのPDD症例では6.8%にTD併存があったが、Baron-Cohenら(1999)の併存率に近い値であった。このような併存率の差は、疫学研究か、対象が学校か医療機関か、あるいは対象の知的水準や、PDDの対象を自閉症に限るか、アスペルガー障害や特定不能のPDDまで含むかなどが影響すると思われる。また、日本では診療科の特殊性、つまり小児科と精神科を受診する症例の違いや、受診時年齢の違いなどが関係している可能性がある。つまり小児科受診例では、より一般小児人口の中での出現率に近いものと推定される。

また併存例33例のPDDの下位分類は、TD群は92.3%が、PDD群では65%が特定不能のPDD(PDDNOS)であった。2群全体では33例中25例、75.8%がPDDNOSであった。

Burdら(1978)は、TDとPDDの併存例12例のうち、2例は自閉症で、10例、83.3%が非定型PDDであったと報告しており、われわれのTD群の値と類似していた。

杉山(2003)は、307例の高機能広汎性発達障害の下位分類では、自閉性障害が167例、54.4%，アスペルガー障害が66例、21.5%，

PDDNOSが74例、24.1%であったという。

つまりPDDNOSの割合は、杉山のPDD症例では24.1%，われわれの併存例のPDD群で65.0%，TD群で92.3%と順に高率になっていた。つまりTDの要素が強くなるほどPDDの臨床的特徴が不明瞭になる可能性を示唆している。視点を変えると、PDD症例、問題行動を主訴としたTDとPDDの併存例、チックを主訴とした併存例、TD症例という生物学のあるいは遺伝的な一連の連続性が推測される。

ただこれについては、同一施設で行動上の問題で小児科受診をしたTD併存のないPDD症例、問題行動のないTD症例も含めて、今後検討する必要がある。

またTD群13例中2例は、受診後の経過中に保護者が情緒的交流の難しさに気づいていたが、TDに併存する障害としてよく知られているADHDに比較して、PDDの併存は見落とされる可能性がある。このような結果から、TDの経過をみていくときには、それほど典型的ではないPDDの特徴にも注意して、早期に適切な援助が行えるよう注意していく必要がある。

PDD群では20例中3例は経過中にTDの併存が確認され、1例は保護者が以前からチックに気づいており、TDの診断基準を満たしたのがその後の経過中であった。また他の1例は、受診後の経過中の発症であった。他の1例のみが初診時の問診でチックがあることを確認できていなかった。つまり初診時の問診で、まばたきや頭を振る、咳払いをするという頻度の高いチックを具体的に説明することで、95%の症例でTD併存を確認することが可能であった。つまりPDD群では適切な問診を行うことで、TD併存のある症例の多くは初診時に確認できると思われた。

3. WISC-III

WISC-IIIでは、VIQ、PIQとも2群間で差はなく、FIQでも差はみられなかった。ただ、有意差はないものの両群ともPIQが低い傾向があり、また、FIQはわずかにPDD群が低い傾向があった。

これが2つの障害の併存例の特徴かもしれないが、これについてはPDD併存のないTD群、TD併存のないPDD群についても下位項目を含めて検討する必要があり、またADHDの併存や学習障害の併存との関連についても調査する必要があると思われた。

4. チック症状(運動性チックと音声チック)

チック症状についてTD群とPDD群を比較すると、TD群では運動性チックは末梢に広がりやすい傾向が、音声チックでは複雑性音声チックが多い傾向がみられたが、有意差はなかった。

Fahn (1982)は、運動性チックは出現部位が広がるほど、また音声チックは単音節の発声より汚言の方が重症であるとしたが、これに従うと併存例を主訴で2群に分類した場合には、TD群がやや重症の傾向があったが大きな差異は見られなかった。

金生(2008a)はPDDの併存のないTD患者40例と併存例10例を比較検討し、チックの種類は差がなかったという。今回の33例がPDD併存のないTD症例と比較して、チックの種類に差があるか否かは今後検討する予定である。

5. トウレット障害の重症度評価と服薬の

有無

トウレット障害の総合重症度評価については、TD群では極めて軽度とされたものは30.8%であったが、PDD群では95%を占めていた。つまりPDD群のチックについては、重症度が低く、家族は気づいていても生活に困難はきたさないと考えられる。

服薬の有無については、TD群では38.5%，

PDD群では5%が、チックのために服薬していた。2群間に有意差はなかったが、PDD群ではほとんど服薬の必要がない軽症例が多いという臨床での印象と一致した。

ただ金生(2009)は、59例のトゥレット障害の症例のうち33例、55.9%で初診時に服薬が必要であったという。われわれの結果は、学童期に小児科を受診する症例の特徴であり、つまり思春期以後に精神科を受診するものとは異なった水準の症例をみていると思われるが、今後、服薬した症例のその後の経過や、服薬しなかった症例の経過について、思春期、青年期以降まで追跡して検討することが必要と思われる。

6. 他の併存症

本研究の対象となった33例の中でADHDの診断基準を満たしたものはないなかつたが、半数以上にADHDの傾向がみられ、多くは不注意型の傾向があった。強迫性障害については1例で疑いがあったが、診断には至らなかつた。不登校はいずれの群でも約15%に認められた。

桑原ら(2006)は、ADHDはTDの併存症の中では頻度が高く、50%以上におよぶという。しかし岡田(2009)はトゥレット障害についての小児科医と精神科医への調査より、小児科医が診療している患者ではADHDの併存は少ないと記載している。

われわれの症例では、DSM-IV-TRの記載にある、社会的、学業的機能において臨床的に著しい障害が存在するという部分は合致せず、ADHDとは診断しなかつた。

金生(2008a)はPDDの併存のないTD患者と併存例の比較では、強迫性障害を併存する割合は、PDDを伴う場合は60%であるのに対しPDDを伴わない場合は20%であり、TDとPDDの併存患者で有意に高率であったという。しかし、われわれの症例では明らかに強迫性障害といえる症例はなかつた。

不登校については、金生はTDとPDDの併存例では60%であったと述べているが、われわれの症例では15%と、差異がみられた。

金生(Kano et al, 1988)は76例の多くは知的障害がある自閉症のうち2例でTSを併存し、この2例では人や物にくり返し触る行動や変化への強い抵抗も長期間持続し、適応面も含めて予後不良であったという。また三島ら(1994)の報告では著明な自傷や強い他傷などの11項目で評価して環境への著しい不適応を有する強度行動障害であると判定された人の多くは自閉症にTDを併存していたという。またPDDにTDを併存すると自傷や他害などの衝動の抑制を欠く行動障害が多いとする報告(三島ら、1999)もある。

これらの報告からはPDDとTDの併存では強迫性障害が高率になり、適応が悪く強度行動障害を有する場合が多くなると推定されるのだが、われわれの症例では、自傷や他害などの攻撃行動を認めた症例はなかつた。

岡田(2009)は前述の調査の中で、小児科医が診療している症例は学童期が多く、また軽症例が多いと記載している。われわれの対象とした症例も多くは学童期であり、思春期以後の症例が少なかつたことが強迫性障害や不登校、自傷、他害の出現率が低いことと関連している可能性がある。

これらの結果が小児科受診例の特徴なのか、TDとPDD併存例の特徴なのかは、PDD併存のないTD症例、TD併存のないPDD症例も含めて比較し、また青年期を越える予後調査が必要と考えられる。

7. TDとPDD併存例への対応

桑原ら(2006)は精神科での経験から、チック障害とPDDの併存例について、治療を行うにあたってはPDDの特徴を踏まえた療育的治療に加え、衝動の抑制の悪さや、チック症状に関してはチック障害単独の場合より薬物の効果が劣る

ことなどに留意した対応が求められるという。

太田は(2009)，発達障害者支援センターでのチック・トゥレット障害の匿名相談2例を除く16例の相談事例(平均年齢17歳，3歳～35歳)の中で，幼児期にはいじめや育児困難，学童期には学校生活の困難やパニックとチック自体の相談があり，青年期になると強迫症状，不登校，暴力などが挙げられていたという。

また太田は(2009)，同センターの相談事例の中で，TDの併存症としては，PDDが10例中4例，40.0%を占めていたという。この調査結果は，思春期，青年期以降でTDとPDDの併存例が日常生活に困難をきたす率が高くなることを示しているのであろう。

われわれの結果は，小児を精神科に受診せにくいうといふ日本の文化的状況を背景に，小児科と精神科を受診する患者の年齢的，質的な差があるための偏りを示していると推定される。

行動の問題で受診するPDD症例は，早期にPDDへの対応が開始されるが，チックで受診したTD症例では，PDDに気づかれていないためPDDへの配慮が遅れ対応を誤ることが臨床的には問題になる可能性がある。

本研究の結果からは，TDあるいはPDDの診療では，早期の対応のために2つの障害の併存に注意して診療する必要があり，また今後は小児科，あるいは精神科での調査だけでなく，学校や発達センターなども含む広い範囲での調査の継続が望まれ，また，学童期に受診した症例を前方視的に経過を見ていく必要があると考えられた。

文 献

American Psychiatric association 編，高橋三郎，大野 裕，染矢俊幸訳(2004a)：トゥレット障害，DSM-IV-TR，精神疾患の診断・統計マニュアル新訂版，医学書院，東京，pp.118-124

American Psychiatric association 編，高橋三郎，大

野 裕，染矢俊幸訳(2004b)：広汎性発達障害，DSM-IV-TR，精神疾患の診断・統計マニュアル新訂版，医学書院，東京，pp.82-96

Baron-Cohen S, Scahill VL, Izquierre J et al (1999) :

The prevalence of Gilles de la Tourette syndrome in children and adolescents with autism: a large scale study. Psychol Medicine 29 : 1151-1159

Burd L, Fisher WW, Kerbeshian J et al (1978) : Is development of Tourette disorder a marker for improvement in patients with autism and other developmental disorders? J Am Acad Child Adolesc Psychiatry 26 : 162-165

Fahn S (1982) : The clinical spectrum of motor tics. Gilles de la Tourette syndrome Advances in neurology 35, Raven Press, New York, pp.341-344

Hollander E (1998) : Treatment of obsessive-compulsive spectrum disorder with SSRIs. Br J Psychiatry 35 : 7-12

星加明徳，荒田美影，海老原亜貴子(2009)：小児のトゥレット障害におけるShapiroのTourette症候群重症度尺度を用いた重症度評価。小児の精神と神経(第51巻1号に掲載予定)

金生由紀子(1994)：特徴的な常同行為。発達障害医学の進歩6 : 22-23

Kano Y, Ohta M, Nagai Y et al (1988) : Tourette's disorder couple with infantile autism: A prospective study of two boys. Jpn J Psychiatr Neurol 42 : 47-57

金生由紀子(1998)：チック，トゥレット症候群。こころの臨床 a la carte 17 (増) 精神疾患 100の仮説 : 281-283

金生由紀子(2004)：トゥレット症候群と自閉症。

こころのりんしょう a la carte23 (3) : 59-63

金生由紀子(2008a) 小児のトゥレット障害(2) その併存症。小児の精神と神経48 (4) : 318-325

金生由紀子(2008b) : Tourette症候群。小児科臨床61 (12) : 2575-2580

金生由紀子(2009) : チック障害における向精神薬処方に影響を与える要因に関する研究。厚生労働科学研究費補助金(障害保健福祉総合研究事業) 平成20年度分担研究報告書、トゥレット症候群の治療や支援の実態の把握と普及啓発に関する研究 : 31-35

桑原 齊，金生由紀子(2006)：発達障害としてのチック障害。発達障害医学の進歩18 : 19-28

三島卓穂，川崎葉子，飯田雅子，他(1999) :

- 強度行動障害の臨床的研究、発達障害研究21
：202-213
- 岡田 俊（2008）：トゥレット障害と発達障害の
comorbidity - 強迫性と衝動性の観点から - 、こ
ころのりんしょうala carte27（1）：135-142
- 岡田 俊（2009）：トゥレット症候群に対する薬
物療法を中心とする支援の検討、厚生労働科学
研究費補助金（障害保健福祉総合研究事業）平
成20年度分担研究報告書、トゥレット症候群の
治療や支援の実態の把握と普及啓発に関する研
究：69-74
- 太田昌孝、他（1989）：自閉症児の認知発達治療
および治療効果の評価についての方法論と評
価尺度の開発に関する研究、三菱財団研究中
間報告書 付録II-2 ShapiroのTourette症候群重
症度尺度（Shapiro Tourette Syndrome Severity
Scale）
- 太田昌孝（2009）：発達障害者支援センターにお
けるトゥレット症候群の実態と普及啓発活動、
厚生労働科学研究費補助金（障害保健福祉総合
研究事業）平成20年度分担研究報告書：79-83
- Shapiro AK, Shapiro ES, Young JG et al (1988a) :
Severity of symptoms, Gilles de la Tourette
- syndrome. second edition. In. Raven Press,
NewYork, pp.176-179
- Shapiro AK, Shapiro ES, Young JG et al (1988b) :
Measurement of tic disorders, Gilles de la
Tourette syndrome, second edition, In Raven
Press, NewYork, pp.451-453
- Shapiro AK, Shapiro ES, Young JG et al (1988c) :
Gilles de la Tourette syndrome. second edition,
In Raven Press, NewYork, pp.508-509
- 杉山登志郎（2003）：高機能広汎性発達障害にみ
られるさまざまな精神医学的問題に関する臨
床的研究、乳幼児医学・心理学研究12（1）
：11-25
- 杉山登志郎（2007）：Asperger症候群の周辺、児
童青年精神医学とその近接領域49（3）：243-
258
- Wechsler D (1998) : 日本版WISC - III刊行委員会
訳編著 : Wechsler
Intelligence Scale for Children-Third Edition, 日本
文化科学社, 東京
- 山中奈緒子, 星加明徳（2005）：トゥレット障害
小児83例の臨床的検討、小児の精神と神経45
(4) : 331-339

* * *

Summary

A Clinical Study on the Comorbidity of Tourette's Disorder and Pervasive Developmental Disorders in Children

Mikage ARATA, Akinori HOSHIKA, Akiko EBIHARA

We studied 33 children with Tourette's disorder (TD) and pervasive developmental disorders (PDD) as comorbidities. Thirty three children were classified into the following two groups : the TD group examined for tics and the PDD group for behavioral problems. There were 13 children (11 boys, 2 girls) in the TD group and 20 (20 boys) in the PDD group. In the TD group, 92.3% and 65% of the PDD group were diagnosed with PDDNOS in the subdivision of the DSM- IV -TR diagnostic criteria. The severity of the TD group was higher than the one of the PDD group by Shapiro Tourette syndrome severity scale. ($p < 0.01$) In the PDD group, 95.0% of all cases could be classified as "very mild" however only 30.8% in the TD group. In the TD group, 38.5% and 5% in PDD group needed medication for tics. The rate of school non-attendance in the TD group was 15.4%, which was almost the same as that in the TD group, 15.0%.

トウレット障害における服薬の必要性と重症度についての臨床的検討

海老原 亜貴子 星 加 明 徳 荒 田 美 影

東京医科大学小児科学講座

【要旨】

【目的】 小児のトウレット障害における服薬の必要性と重症度について検討し、その関連性を調べることを目的とした。

【対象および方法】 対象は小児科を受診したトウレット障害小児 59 例であり、服薬群 23 例と非服薬群 36 例に分類した。服薬は患児がチックにより日常生活に困難を感じた場合に行い、チックの重症度は Shapiro のトウレット症候群重症度尺度 (STSSS) を、生活全体の機能評価は機能の全体的評価尺度 (GAF) を用いて評価した。

【結果】 運動性チックの出現部位数と音声チックの種類は、有意に服薬群で多かった ($P<0.05$)。また、運動性チックの出現部位の中で下肢のチックのみ服薬群で多かった ($P<0.05$)。音声チックの種類では、汚言は服薬群で多く認められた ($P<0.01$)。STSSS における評価の 5 項目の各変数の評点は、拘束・入院中かを除く 4 項目全てで服薬群が有意に高値であった ($P<0.05$)。また、評点の合計においても服薬群が有意に高値であった ($P<0.01$)。評点の合計が 0.5 から 2.5 の症例では、各項目の評点は、活動を妨げるかの項目のみ、服薬群が高値であった ($P<0.05$)。服薬開始の誘因となったチック症状は音声チックが 65% を占めており、運動性チックは 35% であった。GAF は服薬群で有意に低値であった ($P<0.05$)。

【結論】 トウレット障害において、STSSS と服薬開始の決定に相関が見られた。

はじめに

トウレット障害は、チックが 18 歳以前に発症し、複数の運動性チックと 1 つ以上の音声チックが 1 年以上持続するものである¹⁾。この障害の服薬の適応について Jhonstone は、運動性チックまたは音声チックが、患児の友人との人間関係や学校生活や学習などの日常生活を顕著に妨げるなら投薬を考慮すべきであると記載しているが、明確な基準はない²⁾。トウレット障害の重症度を評価するための尺度として、Shapiro のトウレット症候群重症度尺度 (Shapiro Tourette Syndrome Severity Scale : STSSS) や、Yale

チック重症度尺度 (Yale Grobal Tic Severity Scale : YGTSS) がある³⁻⁵⁾。その他、Farrn や金生、新井らによっても重症度の評価について記載されているが、重症度と服薬開始の基準における研究報告は少なく、現在明確な基準はない⁶⁻⁸⁾。我々の小児科外来診療では、音声チックが顕著な場合と運動性チックが頻回で強い場合に、日常生活で困難をきたし、チックの軽減のため服薬が必要であったように感じていた。この研究ではそのような臨床上の印象を確認するとともに、STSSS と日常生活全体の水準を評価する機能の全体的評価尺度 (Global assessment of Functioning : GAF) を用いて、重症度と服薬開始

平成 22 年 1 月 28 日受付、平成 22 年 2 月 22 日受理

キーワード：トウレット障害、重症度、服薬、小児

(別冊請求先：〒160-0023 東京都新宿区西新宿6-7-1 東京医科大学小児科学講座 海老原亜貴子)

TEL：03-3342-6111 (内線 5803) FAX：03-3344-0643

の状況について後方視的に検討し、服薬開始時のチックの種類とチックの重症度、日常生活の水準などを組み合わせて、服薬開始の基準を提示することを目的とした⁹⁾。

対象および方法

対象は、平成16年1月から平成18年12月の3年間に、東京医科大学病院小児科を受診したトゥレット障害小児のうち、明らかな知的障害がなく、初診時と経過中、チックや家庭と学校での日常生活について詳細に記載されていた59例を対象とした。トゥレット障害の診断は、DSM-IV-TR精神疾患の診断・統計マニュアルによって行った¹⁰⁾。

対象の59例は、服薬群23例と非服薬群36例に分類され、服薬は患児がチックにより日常生活に困難を感じた場合に行なった。

診療録の記載は初診時に、初発から初診時までにみられたチックの種類と出現順位、保護者の記憶があればそのチックが出現した年齢が記載され、その後の受診時に新しく加わったチック症状も含めて、そのときにある症状を確認し記載されていた。また診療ごとに日常生活での支障や、家族、友人、担任教師、見知らぬ人の反応などについて患児や保護者に尋ね、さらには保護者を介して担任教師からの情報を得るように努め、それらも診療録に記載されていた。

知的水準の評価は、服薬群23例中14例、非服薬群36例中13例で、WISC-IIIを用いて行われていた。WISC-IIIが施行されなかった患児も、発達についての問診で知的障害を疑われた児はいなかった。

チックの臨床像の評価には、山中らのチック症状の分類を一部改変し、運動性チックは出現部位によって、顔面、頸部、肩、上肢、軀幹、下肢、全身の7部位に、音声チックは鼻症状、咳払い、単音節の発声、複雑性音声チック、汚言の5種に分類した¹⁰⁾。

トゥレット障害としての重症度は、服薬群では服薬開始時に、非服薬群では保護者がチックが最も重症であったと感じた時期について、後方視的に評価が可能なSTSSSを用いて、主治医であった小児科医とトゥレット障害の診療に携わったことのある小児科医が合議して評価した。また生活全体の機能評価はGAFを用い、同時期について診療録の記載から行なった。2群間の検定にはMann-Whitney's U testを、各々のチックの種類と頻度に関しては χ^2 検定を用いて評価した。また、STSSSとGAFの相関を調べるために単回帰分析を施行した。

結 果

1. 患者背景

性別では服薬群では23例中18例、非服薬群では36例中25例が男児であり、両群とも男児が多い傾向があったが2群間に有意差はなかった。発症年齢は服薬群 5.6 ± 2.2 歳、非服薬群 4.5 ± 1.7 歳で、服薬群が高年齢で発症していた($p < 0.05$)。初診時年齢は服薬群 9.0 ± 2.1 歳、非服薬群 8.3 ± 2.7 歳で、有意差はなかった(Table 1)。

WISC-IIIでは、服薬群は言語性IQ 101.3 ± 13.4 、動作性IQ 92.9 ± 12.3 、全検査 97.1 ± 12.2 で、非服薬群では言語性IQ 105.5 ± 11.3 、動作性IQ 94.5 ± 8.2 、全検査 100.1 ± 8.7 であり、いずれも服薬群でやや低い傾向はあるものの2群間に有意差はなかった。ま

Table 2 Comparison between the medication group and the non-medication group regarding WISC-III score

WISC-III	medication	non-medication
verbal IQ	101.3 ± 13.4	105.5 ± 11.3
performance IQ	92.9 ± 12.3	94.5 ± 8.2
total	97.1 ± 12.2	100.1 ± 8.7

WISC-III was not significantly different between the medication group and the non-medication group, however performance IQ tended to show a lower score than verbal IQ in both groups.

Table 1 Comparison between the medication group and the non-medication group

	medication	non-medication	
male	18	25	
female	5	11	
patient's age at onset (y)	5.6 ± 2.2	4.5 ± 1.7	$P < 0.05$
patient's age at first visit (y)	9.0 ± 2.1	8.3 ± 2.7	

medication: medication group non-medication: non-medication group

*Mann-Whitney's U test was used for assessment of the 2 groups

た服薬群の言語性と動作性、非服薬群の言語性と動作性にも差はなかった（Table 2）。

2. チック症状

運動性チックの出現部位数は、服薬群 4.0 ± 1.3 部位、非服薬群では 3.3 ± 1.4 部位であり、音声チックの種類は、服薬群 2.2 ± 1.0 種類、非服薬群 1.7 ± 0.8 種類で、運動性チックの出現部位数と音声チックの種類は、有意に服薬群で多かった ($p < 0.05$) (Table 3)。運動性チックの出現部位は、2群とも顔面と頸部が多く末梢では少ない傾向があるが、2群間での比較では、下肢のチックは服薬群 14 例 61%、非服薬群 12 例 33% となっており、服薬群で有意に多かった ($p < 0.05$)。音声チックの種類では、服薬群では単音節の発声が、非服薬群では咳払いが多い傾向があつたが有意差はなかった。汚言の出現は服薬群で 4 例 17% 認めたが、非服薬群では認められず、2群間で有意差を認めた ($p = 0.01$) (Table 4)。

Table 3 The number of locations in which the motor tics appear and the types of vocal tics in individual patients

	medication	non-medication	
motor tics	4.0 ± 1.3	3.3 ± 1.4	* $P < 0.05$
vocal tics	2.2 ± 1.0	1.7 ± 0.8	* $P < 0.05$

*Mann-Whitney's U test was used for assessment of the 2 groups.

3. Shapiro のトゥレット症候群重症度尺度 (STSSS)

STSSS における評価のための 5 項目、①気付かれるか、②言われるか、③奇妙だと思われるか、④活動を妨げるか、⑤拘束・入院中の各変数の評点について 2 群を比較すると、⑤を除く 4 項目全てで服薬群が有意に高値であった ($p < 0.01$)。また評点の合計においても服薬群が有意に高値であった ($p < 0.01$) (Table 5)。

STSSS の評点の合計をみると、服薬群は 1.5 から 8、非服薬群は 0.5 から 2.5 と、非服薬群は服薬群に比べて評点の合計の分布が小さかった (Table 6)。これより評点の合計が 0.5 から 2.5 の症例、服薬群 8 例、非服薬群 36 例について再度検討した。性別では両群共に男児に多い傾向だったが、2 群間に有意差はなかった。発症年齢は、服薬群 6.3 ± 2.3 歳、非服薬群は 4.5 ± 1.7 歳で、服薬群の方が有意に高年齢で発症していた。初診時年齢は服薬群 8.9 ± 2.7 歳、非服薬群 8.3 ± 2.7 歳で、有意差はなかった。各項目の評点は「④活動を妨げるか」の項目のみ有意差を認めた ($p < 0.05$) (Table 7)。

4. 服薬開始の状況

23 例の服薬開始の状況を、表 8 に示した。音声チックが服薬開始の誘因になったものが 15 例 65% を占めていた。その中で単純性音声チックは 11 例中 10

Table 4 Types and frequency of tics

A) motor tics			
motor tics	medication	non-medication	
face	22(96%)	35(97%)	$P=0.75$
neck	19(83%)	29(81%)	$P=0.84$
shoulder	7(30%)	13(36%)	$P=0.65$
superior limb	15(65%)	17(47%)	$P=0.17$
soma	10(43%)	8(22%)	$P=0.08$
lower limb	14(61%)	12(33%)	* $P=0.04$
whole body	5(22%)	12(33%)	$P=0.14$

B) vocal tics			
vocal tics	medication	no medication	
nose	7(30%)	9(25%)	$P=0.65$
cough	13(57%)	23(64%)	$P=0.57$
strange sound of monosyllables	17(74%)	20(56%)	$P=0.16$
complex vocal tics	10(43%)	8(22%)	$P=0.08$
coprolalia	4(17%)	0	* $P=0.01$

* χ^2 test was used for assessment of the 2 groups.

Table 5 Shapiro Tourette Syndrome Severity Scale (STSSS)

	medication	non-medication	
① tics noticeable to others	1.4±0.8	0.7±0.2	*P<0.01
② tics elicit comments or curiosity	0.5±0.3	0.1±0.2	*P<0.01
③ patient considered odd or bizarre	0.8±0.7	0.2±0.3	*P<0.01
④ tics interfere with functioning	1.0±0.7	0.1±0.3	*P<0.01
⑤ incapacitated, home bound, or hospitalized	—	—	—
total	3.8±1.8	1.1±0.6	*P<0.01

* Mann-Whitney's U test was used for assessment of the 2 groups.

Table 6 Shapiro's total score, minimum score, and maximum score.

	medication	non-medication
total score	3.8±1.8	1.1±0.6
minimum score	1.5	0.5
maximum score	8	2.5

例がアッ、アッという大きな単音節の発声で、1例が大きな咳払いであった。複雑性音声チックの4例は、全例汚言を認め、学校で友人に指摘されたためであった。

運動性チックが誘因になったものは8名35%で、顔面の3例中2例は舌を咬む、1例は頬粘膜を咬むチックのため服薬を開始していた。頸部の1例は激しい頭部の後屈のため頸部の痛みを訴えたため、上

肢の1例は右上肢のチックのため食物をこぼしてしまうことが、全身のチックでは食事や学習などの日常生活の障害のため、服薬を開始していた。また単純性音声チックの1例、頸部のチックの1例、全身性チックの1例では、治療開始まで強い疲労感を訴えていた。評点の合計が0.5から2.5の症例でも服薬の誘因は類似していたが、口の中を咬むチックや全身のチックは、評点が低値でも服薬を開始していた(Table 8)。

5. 機能の全体的評定尺度 (GAF)

GAFは、服薬群64.5±8.4、非服薬群76.6±10.4であり、服薬群が有意に低値であった(P<0.05)。またその分布を検討すると、服薬群は61から70の症例が23例中11例47.8%を占め、非服薬群では81から90の症例が36例中19例52.8%を占めてい

Table 7 Comparison between the medication group and the non-medication group in cases where Shapiro's total score was limited from 0.5 to 2.5.

A) number of objects and gender ratio.

	medication	non-medication	
Number	8	36	
male (number, %)	5(63%)	25(69%)	
female (number, %)	3(37%)	11(25%)	
age at onset (y)	6.3±2.3	4.5±1.7	P*<0.05
age at first visit (y)	8.9±2.7	8.3±2.7	

B) Shapiro's score of each item in cases in which Shapiro's total score is from 0.5 to 2.5.

	medication	non-medication	
① tics noticeable to others	0.8±0.4	0.7±0.2	
② tics elicit comments or curiosity	0.3±0.3	0.1±0.2	
③ patient considered odd or bizarre	0.4±0.4	0.2±0.3	
④ tics interfere with functioning	0.8±0.7	0.1±0.3	P*<0.05
⑤ incapacitated, home bound, or hospitalized	—	—	

* Mann-Whitney's U test was used for assessment of the 2 groups.

Table 8 Patients' condition at the beginning of the start of medication.

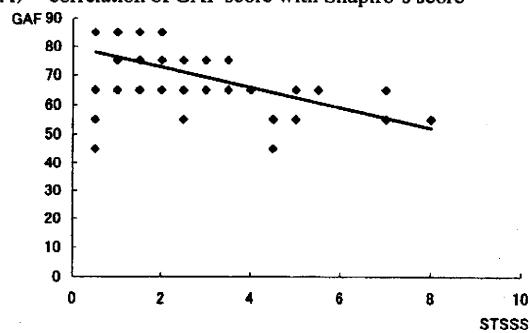
	number	ratio (%)	number*
vocal tics	15	0.65	3
simple vocal tics	11	0.48	3
complex vocal tics	4	0.17	
motor tics	8	0.35	5
face	3	0.13	2
neck	1	0.04	
superior limb	1	0.04	1
whole body	3	0.13	2
severe fatigue	3	0.13	1

*number of patients with total score limited from 0.5 to 2.5

Table 9 Global Assessment of Functioning (GAF)

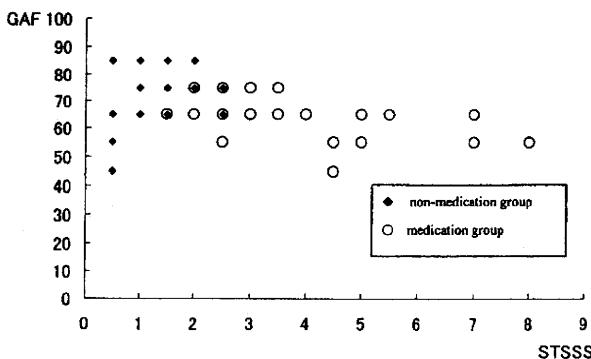
GAF score	medication	non-medication
81-90	0	19
71-80	6	8
61-70	11	7
51-60	5	1
41-50	1	1

A) correlation of GAF score with Shapiro's score



Shapiro's score weakly correlated with GAF score ($R^2=0.29$, $R=0.54$).

B) Patient distribution in the medication group and the non-medication group



We needed medication in cases of $GAF \leq 80$, and $STSSS \geq 3$.

Fig. 1 Correlation of GAF score with Shapiro's score.

た (Table 9)。

GAF と STSSS の評点の合計について単回帰分析を行ったところ、 P 値 <0.01 、 $R^2=0.29$ 、 $R=0.54$ となり、弱い相関関係が見出され、回帰直線は予測に役立つ傾向が示された。特に、GAF が 80 点以下、かつ STSSS の評点の合計が 3 点以上の症例は全例投薬を必要とした (Fig. 1)。

考 察

Tourette 障害は、DSM-IV-TR では複数の運動性チックと少なくとも 1 つ以上の音声チックが 1 年以上見られる慢性のチック障害で、18 歳未満に発症すると定義されている。Mary の報告によると、5 歳から 16 歳までの児童における Tourette syndrome の罹患率は約 1% とされ、決して珍しい疾患ではないことが示唆される¹¹⁾。チック治療の総合的な評価の視点の 1 つとして、近年、Tourette 障害の Quality of Life Scale (GTS-QOL : The Gilles de la Tourette Syndrome-Quality of Life Scale) も提示され、評価基準が進歩している¹²⁾。また、チックの重症度を、(1) チック自体の重症度、(2) チックによる悪影響の重症度、(3) 併発症状の重症度、の 3 つ視点から全体の重症度を評価する、という金生らの報告や、チックの重症度はチック自体の本人への負担とチックによる周囲への影響で評価する、と言った新井の報告、また、日常生活でチックに起因する困難があれば薬剤の服用を考慮すると言った星加らの報告もある⁷⁾⁸⁾¹³⁻¹⁵⁾。

アメリカトゥレット協会の薬物療法ガイドラインでは、Tourette 障害における薬物療法の使用決定は、チック自体、あるいは注意欠陥多動性障害 (ADHD : attention-deficit hyperactivity disorder) や強迫症状 (OCS : obsessive-compulsive symptoms) などの併存症の中で、標的症状を決定し、薬物開始を検討すると記載されているが、実際の開始基準に関しては明記されていない¹⁶⁾。以上を踏まえると、Tourette 障害の重症度を決定することは单一の要因では決められないことが示唆された。そのため、本研究ではチック自体の重症度だけでなく、症状の社会的場面における影響を総合した STSSS を評価に用い、さらに GAF による評価を踏まえることにより、より多くの観点から Tourette 障害を評価することに努めた。

1. 患者背景

患者背景では、発症年齢は服薬群が非服薬群よりも高年齢であった。金生は75例のチック障害小児の調査において、服薬群と非服薬群を比較し、2群間で発症年齢の有意差はなかったが、服薬群で高齢の傾向はあったと報告している¹⁷⁾。しかしながら、Najahは平均年齢10.4歳の患児を対象にShapiroのスコアで評価した場合、重症なTD患者は早期発症の傾向があると報告しており、重症度と発症年齢の関与に関しては文献によってばらつきを認めた¹⁸⁾。我々の結果からは、低年齢発症の症例は服薬の必要がない軽症の経過を示唆している可能性があつたが、本研究の対象となった症例は学童期の受診例が大部分であり、発症年齢が投薬の必要性と関与するかどうか、思春期以降に受診することが多い精神科受診例も含めて検討する必要がある。

2. チック症状

今回の結果からは、運動性チックではチックの出現部位が多く顔面から末梢に広がるほど重症であり、また音声チックでは単純な音声より汚言のあるものの方が重症であるとしたFarnの記載に一致するものであった⁶⁾。

3. STSSSと服薬開始の状況

STSSSにおいて、評点の合計が0.5から2.5の症例についての検討では、各項目の評点をみると「④活動を妨げるか」の項目のみ、服薬群が高値であり、その他の項目では差がなかった。つまり、チックによって活動を妨げるか否かが重症度の低い症例では服薬の誘因として大きいと考えられた。

Farnらは単音節のチックは軽度と考えたが、本研究結果ではそれが服薬開始の要因となった症例が全体の48%を占め、音声チック自体の重症度評価の重要性が示唆された。同様に、金生の報告でも、服薬の有無に影響を及ぼす要因が音声チックの重症度であると記載されていた¹⁷⁾。今回、チックの評価にはSTSSSを用いたが、チック自体の評価にはSTSSSよりもYGTSSの方が適しており、今後検討する必要がある⁵⁾¹⁹⁾²⁰⁾。

評点の合計が2.5以下の症例では、「活動を妨げるかどうか」が服薬の必要性と強く関連していたが、音声チックが服薬に関係したのは3名のみで、5例は運動性チックが関連していた。この5例の服薬と関連する運動性チックでは、顔面（口の中を咬む）と全身（全身の強直や振動）が5例中4例を占めて

いた。つまり重症度の低い症例では運動性チックが日常生活に支障をきたす割合が多くなっていた。

5. GAF

GAFは服薬群が有意に低値であったが、その分布をみると服薬群では60から70が多く、服薬群でも全体的機能はそれほど低くはないという結果であった。またGAFとSTSSSの評点の合計との間に弱い相関が認められた。トゥレット障害が重症である程、家庭や学校での日常生活全体の水準も低くなっているおり、結果としてチック自体、及びチック症状による生活への悪影響を考慮し投薬を開始することが示唆された。

金生は、チック症状による悪影響の重症度をGAFで測定し、未成年に限った解析ではGAFが向精神薬の処方の有無と有意に相關しており、未成年では処方の有無に影響を与える要因として、チック症状による悪影響の重症度が無視できない要因であると考えている。また、未成年では薬物療法のエビデンスが乏しく、向精神薬処方の有無を合理的に決定することが困難で、結果として登校しぶりなどのチック症状による悪影響のため長期的な視点でやむをえず薬物療法を行っていたと推測されると言及した¹⁷⁾。

今後は、服薬群での服薬期間や服薬量、服薬群と非服薬群の長期経過などをさらに検討する必要があると考えられた。

結語

Tourette障害において、STSSSと服薬には有意な相関が見られた。また、STSSSとGAFにも弱い相関が見られ、両者を併用して評価すると、より明確な重症度の評価と服薬開始の決定に繋がると考えられた。診療では音声チックとしては単音節の大きな発声や汚言、運動性チックでは口の中を咬むチックや全身チックがあり、STSSSが3以上、かつGAFが80以下の場合が服薬開始の基準になると考えられた。また、今後はより詳細な音声チックの評価や、併存症、自傷行為についての検討が必要であることも本研究で示唆された。

参考文献

- 1) 訳 高橋三郎、大野 裕、染谷俊幸：DSM-IV-TR精神疾患の診断・統計マニュアル 新訂版。118-124, 医学書院, 2004

- 2) 高野知行、竹内義博：チック。ネルソン小児科学原著第17版、2048-2049、エルゼビア・ジャパン 2006
- 3) Shapiro AK : Gilles de la Tourette Second Edition. Raven press, New York, 451-480, 1988
- 4) Leckmann JF, Riddle MA, Hardin MT : The Yale Global Tic Severity Scale : Initial testing of a clinician-rated scale of tic severity. Journal of the American Academy Child and Adolescent Psychiatry 28 : 566-573, 1989
- 5) Goetz CG, Kompoliti K. : Rating Scales and Quantitative Assessment of Tics. Clinical Phenomenology : 31-40, 2001
- 6) Farn S : The clinical spectrum of motor tics, Gilles de la Tourette Syndrome. (Eds) Friedhoff AJ and Chase TN, Raven Press, New York, 341-344, 1982
- 7) 金生由紀子：チック・トゥレット障害。精神科治療学 23 : 223-228, 2008
- 8) 新井 卓：トゥレット症候群の重症例への対応。こころのりんしょう a·la·carte 27 : 81-86, 2004
- 9) 訳 高橋三郎、大野 裕、染谷俊幸：DSM-IV-TR 精神疾患の診断・統計マニュアル 新訂版。48-49、医学書院、2004
- 10) 山中奈緒子、星加明徳：トゥレット障害小兒83例の臨床的検討。小兒の精神と神経 45 : 331-339, 2005
- 11) Robertson MM : Diagnosing Tourette syndrome Is it a common disorder ? Journal of Psychosomatic Research 55 : 3-6, 2003
- 12) Cavanna AE, Schrag A, Morley D, Orth M, Robertson MM, Joyce E, Critchley HD, Selai C : The Gilles de la Tourette Syndrome-Quality of Life Scale (GTS-QOL) Development and validation. Neurology 71 : 1410-1416, 2008
- 13) 星加明徳、飯山道郎：子どもにおける向精神薬の使い方。日医雑誌 136 : 1545-1549, 2007
- 14) 金生由紀子：慢性チック障害—慢性運動性チック障害および de la Tourette 症候群—。別冊 日本臨床 領域別症候群 40 : 65-71, 2003
- 15) 星加明徳：小児のトゥレット障害 (1) その歴史と臨床像。小児の精神と神経 48 : 309-317, 2008
- 16) Scahill L, Erenberg G, Berlin Jr CM, Budman C, Coffey BJ, Jankovic J, Kissling L, King RA, Kurlan R, Lang A, Milk J, Murphy T, Zinner S, Walkup J : Contemporary Assessment and Pharmacotherapy of Tourette Syndrome. Neuro Rx 3 : 192-206, 2006
- 17) 金生由紀子：チック障害における向精神病薬処方に影響を与える要因に関する研究。厚生労働省科学研究費補助金 平成20年度分担研究報告書 : 31-35, 2008
- 18) Khalifa N, von Knorring A-L : Tourette Syndrome and other tic disorders in a total population of children : Clinical assessment and background. Acta Paediatrica 94 : 1608-1614, 2005
- 19) Inoko K, Nishizono-Maher A, Satoko T, Yukiko K, Junji K, Norika H, Shuji H, Mari K, Kazuhiko S, Kayoko I, Mariko O : Reliability and Validity of Japanese Version of the Yale Global Tic Severity Scale : A Preliminary Study. J Child Adlesc Psychiatr Vol 47. Supplement : 38-48, 2006
- 20) Storch EA, Murphy TK, Geffken GR, Sajid M, Allen P, Roberti JW, Goodman WK : Reliability and Validity of the Yale Global Tic Severity Scale. Psychological Assessment 17 : 486-491, 2005

A clinical study of Tourette disorder in children and the relationship between the necessity of medication and severity

Akiko EBIHARA, Akinori HOSHIKA, Mikage ARATA

Department of Pediatrics, Tokyo Medical University

Abstract

[Aim] The aim of this study was to evaluate the relationship between the necessity of medication and the severity in children diagnosed with Tourette disorder (TD).

[Subject] The subjects were 59 TD patients treated in our department. The patients in this study were divided into 2 groups: the medication group (23 patients), and the non-medication group (36 patients). We decided to initiate medication when patients felt difficulties in their daily life. We assessed the severity of tics by the Shapiro Tourette Syndrome Severity Scale (STSSS) and the functional assessment of their daily life by Global Assessment of Functioning (GAF).

[Result] The number of locations in which the motor tics appeared and the types of vocal tics were significantly more frequent in the medicated group ($P<0.05$). Among the locations which the motor tics appear, the lower limb parts were significantly more frequent in the medicated group ($P<0.05$). In the types of vocal tics, coprolalia was seen frequently ($P<0.01$). In STSSS, the scores for each variable of 5 evaluation items were high in the 4 categories except the category of "if hospitalized or restricted" ($P<0.05$). Additionally, in the total score, the medicated group was significantly high ($P<0.01$). Among the patients with a total score between 0.5 to 2.5, only the category of "if the tics interfere with functioning" showed a high score ($P<0.05$). Symptoms causing initiation of medication were vocal tics in 65%, and the other 35% were motor. GAF had a significantly low score in the medicated group ($P<0.05$).

[Conclusion] In Tourette disorder, a correlation was seen between STSSS and the decision to start medication.

〈Key words〉 Tourette disorder, Severity, Medication, Children
