

開頭術後に生じた心因性 非てんかん発作に心理社会的 アプローチが著効した1例

小川舞美¹⁾, 大沢伸一郎²⁾, 上利大¹⁾, 柿坂庸介¹⁾, 神一敬¹⁾, 富永悌二²⁾, 中里信和¹⁾

1) 東北大学大学院医学系研究科てんかん学分野 〒980-8575 宮城県仙台市青葉区星陵町 2-1

2) 東北大学大学院医学系研究科神経外科学分野

Key Slide

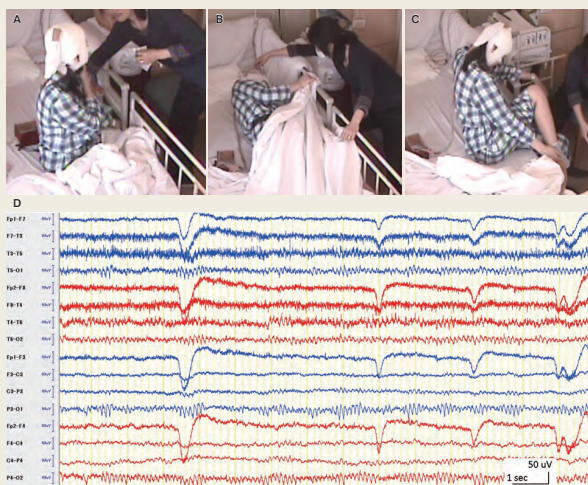


Fig. 3 Clinical presentation of psychogenic non-epileptic seizure (PNES) in video-EEG monitoring

A ~ C : Representative symptoms of the seizure are presented. She described her numbness and motor weakness in her left limbs in detail during the seizure (A). She requested the care-giver to help her with skillfully removing the bedclothes (B) and put on her shoes by maintaining balance with the disabled left arm (C), which appeared “unlikely as experienced during the seizure”.

D : Simultaneous EEG showed no ictal activity in the lesioned left parietal or other areas. Posterior dominant and bilateral background activity were detected during the seizure. The findings were not concordant with the clinical symptoms.

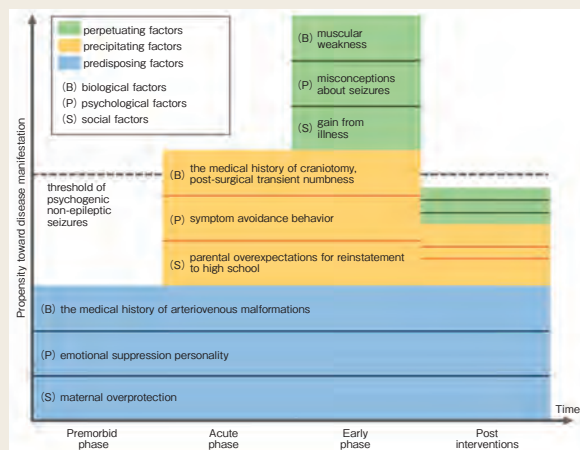


Fig. 4 Case formulation analysis with predisposing, precipitating, and perpetuating factors to explain development and disappearance of psychogenic non-epileptic seizures (PNES)

Predisposing factors were present from the premorbid phase before surgery in the patient. Precipitating factors occurred soon after craniotomy resulting in PNES in the acute phase. Perpetuating factors occurred soon after the acute phase so maintaining PNES in the early phase. Psychosocial evaluation and intervention successfully decreased both precipitating and perpetuating factors, dramatically reducing PNES. All predisposing, precipitating, and perpetuating factors consisted of biological, psychological, and social factors. Case formulation analysis is useful in psychosocial evaluation and intervention to treat PNES⁴⁾.

Psychogenic non-epileptic seizures after craniotomy cured by psychosocial intervention: a case report

Maimi OGAWA ¹⁾, Shin-ichiro OSAWA ²⁾, Dai AGARI ¹⁾, Yosuke KAKISAKA ¹⁾, Kazutaka JIN ¹⁾, Teiji TOMINAGA ²⁾, Nobukazu NAKASATO ¹⁾

1) Department of Epileptology, Tohoku University Graduate School of Medicine

2) Department of Neurosurgery, Tohoku University Graduate School of Medicine

Abstract

Psychogenic non-epileptic seizures (PNES) superficially resemble epileptic seizures but have a psychological rather than an epileptic origin. Long-term video-EEG (VEEG) monitoring is thought to be the most reliable tool to diagnose PNES, as PNES is often misdiagnosed by history taking only. Psychosocial evaluation and intervention are important to treat PNES, and effectively communicating the diagnosis of PNES to patients is the most important step.

We treated a 16-year-old female who developed various types of neurological symptoms such as left leg numbness, emotional instabilities, and consciousness disturbance after craniotomy to remove intracranial arteriovenous malformation (AVM). This patient was previously treated under a diagnosis of post-surgical epileptic seizure due to repetitive and fluctuating symptoms. However, her symptoms were refractory to 6 different antiepileptic drugs and general anesthesia. PNES was finally diagnosed based on VEEG, and she was cured by subsequent psychosocial evaluation and intervention. Our understanding of the patient applied the biopsychosocial model which considers the predisposing, precipitating, and perpetuating factors of PNES. First, the predisposing factors were considered as the medical history of AVM, emotional suppression

personality, and maternal overprotection. Second, the precipitating factors were considered as the medical history of craniotomy, post-surgical transient numbness, symptom avoidance behavior, and parental overexpectations for reinstatement to high school. Third, the perpetuating factors were considered as her muscle weakness due to disuse muscle atrophy, misconceptions about seizures, and gain from illness. PNES treatment was started to correct the perpetuating factors, by communicating the diagnosis of PNES and explaining the mechanism of her symptoms. All her PNES symptoms disappeared after the intervention. Precipitating factors were also reduced through the patient's and parents' better understanding of PNES. The patient returned to school 2 months after the correct diagnosis of PNES.

This case illustrates the considerable importance of psychosocial evaluation and intervention based on the biopsychosocial model for treating PNES.

Key Words : psychogenic non-epileptic seizure, surgical stress, long-term video-EEG monitoring, biopsychosocial model, psychosocial evaluation

(Received December 23, 2020; Accepted March 22, 2021)

Correspondence to Shin-ichiro OSAWA, M.D.,
Department of Neurosurgery, Tohoku University Graduate
School of Medicine, 2-1 Seiryō-machi, Aoba-ku, Sendai-shi,
Miyagi 980-8575, Japan
E-mail: osawa [at] nsg.med.tohoku.ac.jp

I. 諸 言

心因性非てんかん発作 (psychogenic non-epileptic seizures : PNES) は、心理的要因によりてんかん発作と類似した症状を呈する病態である。難治性てんかん、もしくはてんかん重積状態と誤診される場合や、PNES を疑いつつも真のてんかん発作との併存で評価に苦慮し、結果的に不要な抗てんかん薬が長期に使用される場合がある¹⁾。PNES の確定診断には長時間ビデオ脳波モニタリング検査 (long-term video-EEG monitoring : VEEG) が有用である²⁾。PNES の治療には、発症や慢性化に関与する生物・心理・社会的要因を解明し、それらを軽減することが有効なアプローチとなり得る^{3, 4)}。

今回我々は、脳動静脈奇形摘出術後の急性期に PNES を発症した 1 例を経験した。当初は症候性てんかんとして治療されたが改善せず、術後 2 カ月目に VEEG が行われ PNES と診断された。さらに、心理社会的評価によって PNES の発症や慢性化の背景が明確となり、本人への病態説明により PNES は消失した。脳神経外科領域において周術期の心理的負荷は大きく、PNES が惹起されやすいと報告されている⁵⁾。しかし一方で、脳神経外科のみならず医療者全般の PNES への病態理解の不足があり、適切な治療機会を得られない症例が多いと推測される。本症例を啓発の一助とすべく報告したい。

II. 症 例

16 歳女性で、繰り返す意識消失発作の精査目的に当院入院した。精神疾患の既往はない。当院受診 6 カ月前に左上下肢のだるさを主訴として前医脳神経外科を受診し、右下頭頂小葉の脳動静脈奇形と診断された。急速な病変周囲浮腫の悪化があり、当院受診 2 カ月前に経動脈的塞栓術および開頭による縁上回、角回の一部を含む病変摘出術が施行された (Fig. 1)。術後一過性に左不全麻痺を認めたが、7 日目に症状は消失した。しかし術後 14 日目より、左上下肢のだるさを訴えた後、唸り声をあげ四肢をばたつかせる発作が出現した。発作中は呼びかけに反応なく、ジアゼパム静注に対しても発作は 1 時間以上持続した。てんかん重積と判断され、気管内挿管下に 6 日間の麻酔薬持続投与を受けた。抜管後も連日同様の発作を繰り返し、計 6 種類の抗てんかん薬を投与されたが発作は消失しなかった。発作間欠時には慢性的な左上下肢のだるさを訴え、自力では歩行が困難であった。この時点でてんかん発作としては非典型的と判断され、術後 2 カ月で当院に精査入院となった (Fig. 2)。

入院時の神経学的所見としては意識清明で、左下肢の軽度の筋萎縮と徒手筋力テ

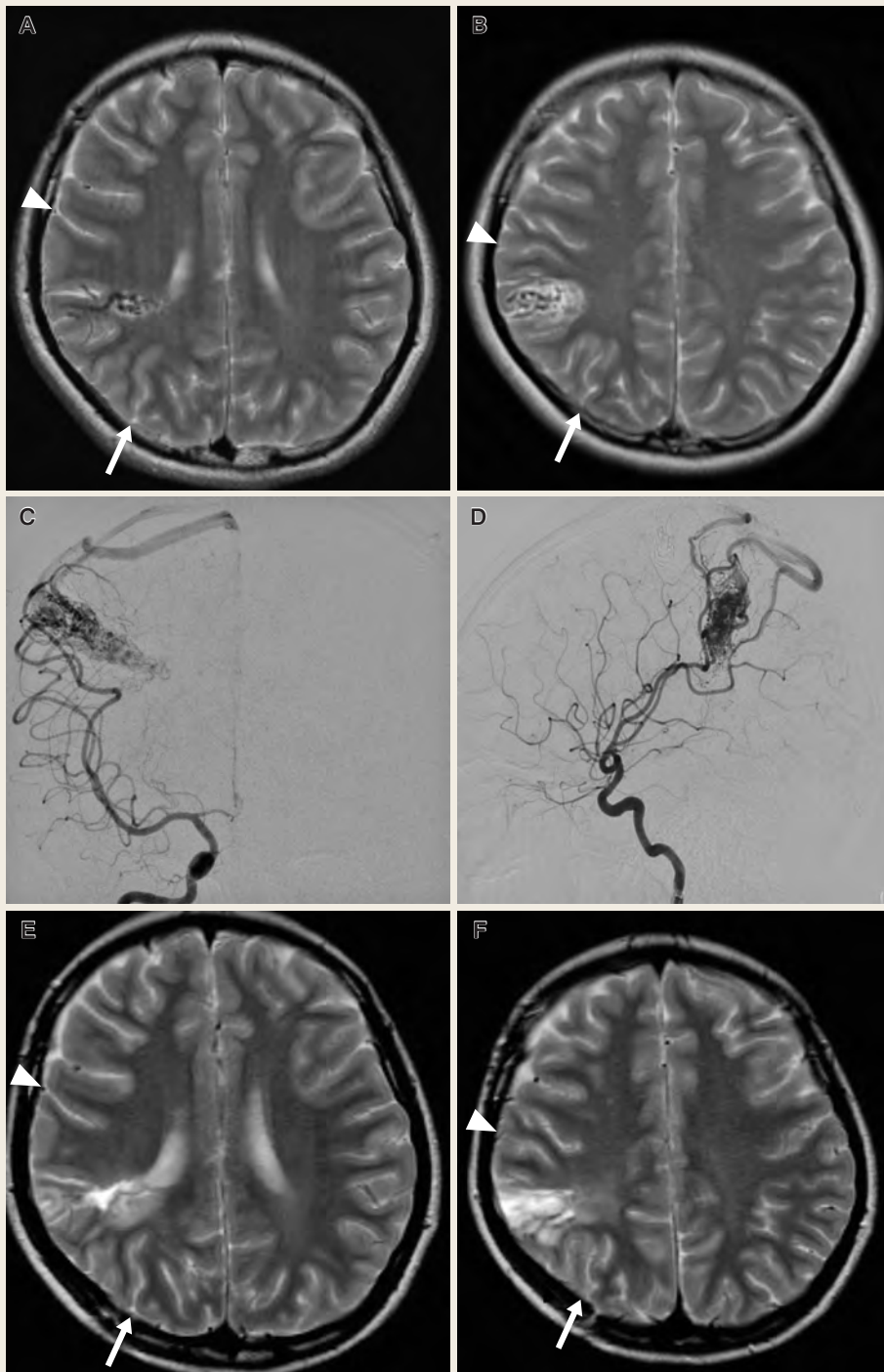


Fig. 1 Imaging studies of the surgery

T2-weighted MR images (A, B) and cerebral angiograms (C, D) before surgery showing the arteriovenous malformation (AVM) in the right parietal lobe. The nidus of the AVM was located in the inferior parietal lobule (arrowheads, central sulcus; arrows, intraparietal sulcus). T2-weighted MR images (E, F) after craniotomy showing the AVM was removed without complication.

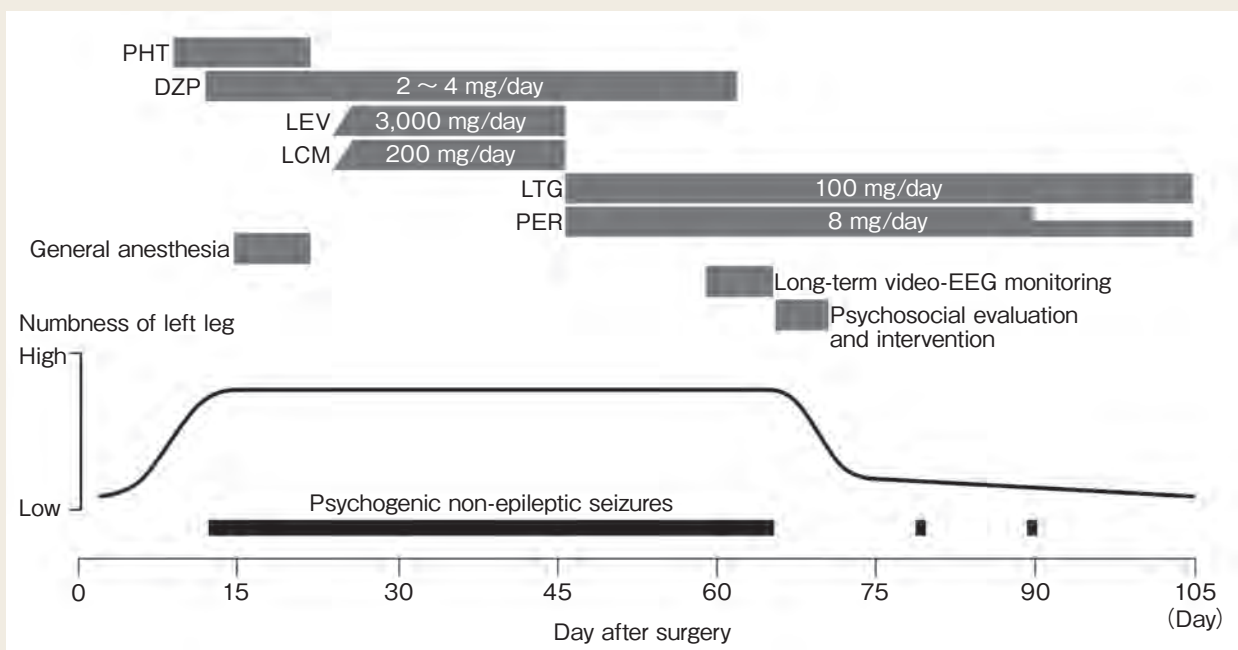


Fig. 2 Summary of the clinical course

Episodic symptoms consisting of unresponsiveness, general muscle weakness, and various subjective symptoms were suspected to represent manifestations of post-surgical epileptic seizures immediately after craniotomy. These symptoms were refractory to multiple antiepileptic drugs and general anesthesia, and were later diagnosed as psychogenic non-epileptic seizures (PNES) as confirmed by long-term video-EEG monitoring. Time course of numbness of the left leg is typical of PNES. PNES disappeared after psychosocial evaluation and intervention. Abbreviations: DZP : diazepam, LCM : lacosamide, LEV : levetiracetam, LTG : lamotrigine, PER : perampanel, PHT : phenytoin.

ストで左下肢 4/5 の筋力低下を認めた。ベッド柵を持ち右下肢で起立できたが、歩行は不能であった。四肢の触覚、温痛覚、位置覚や筋反射は正常であり、失語やプロソディ障害、神経脱落症状は認めなかった。検査に協力的であり、高次脳機能評価として軽度全般性注意低下があるものの、皮質性感覚障害や左半側空間無視ともに認めなかった。

入院後、抗てんかん薬を中止して4日間のVEEGを施行した (Fig. 3)。発作間欠時にてんかん性異常波は認めなかった。普段の発作が複数回確認され、いずれも左上下肢のだるさを訴えた後、ベッド柵にしがみつき、床にずり落ちるところを介護者に支えられた。呼びかけに応答なく、四肢をばたつかせ、繰り返しベッドからずり落ちそうになり、さらには泣き出す状態が最長2時間続いた。本人に発作のビデオを見せると、発作中の記憶はないと答えた。脳波は発作中にも覚醒時基礎波が確認され、てんかん性異常は認められなかった。以上の結果より、現在の発作はPNESと診断された。

ウェクスラー成人知能検査では言語性知能 93、動作性知能 90 であった。質問紙

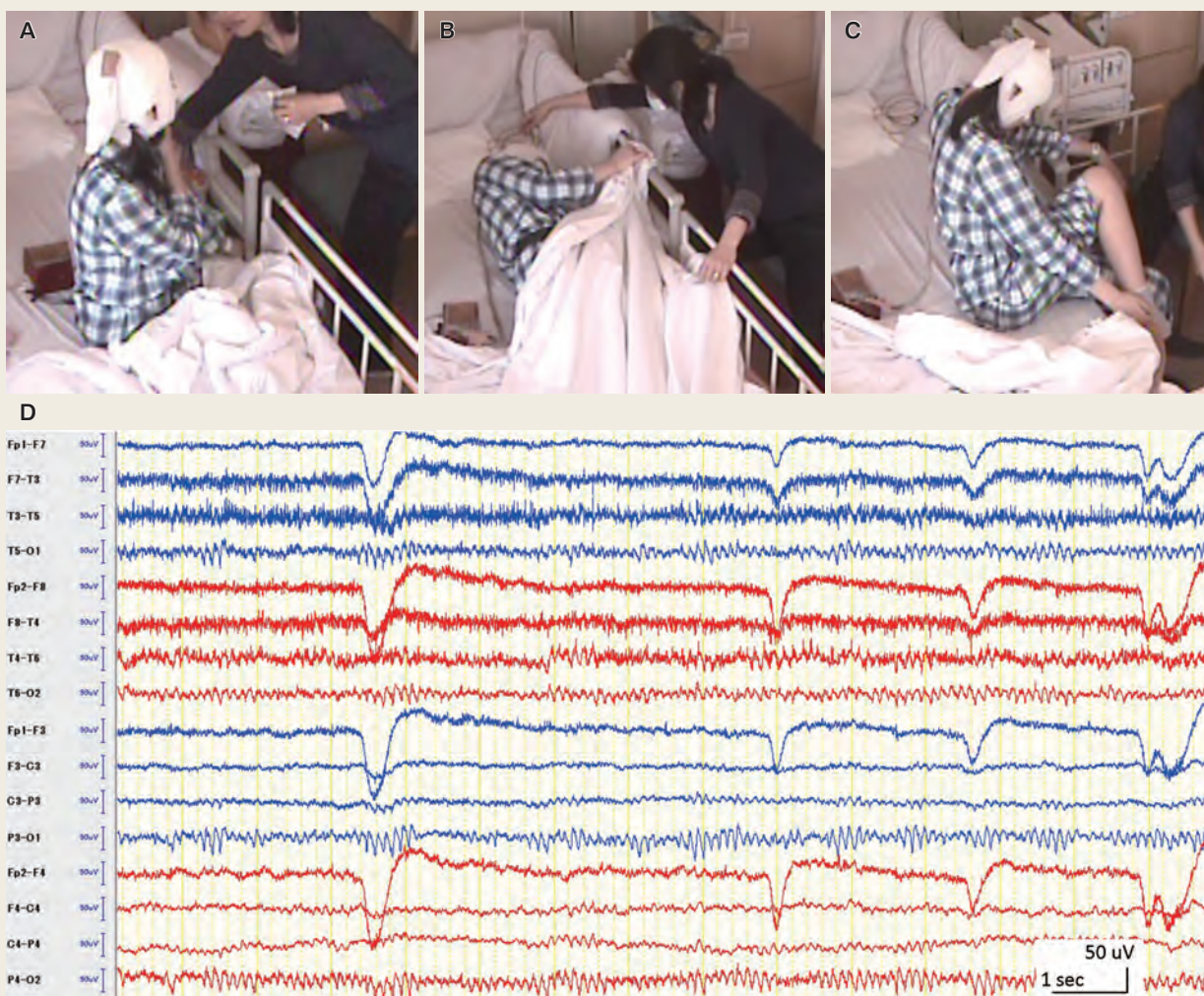


Fig. 3 Clinical presentation of psychogenic non-epileptic seizure (PNES) in video-EEG monitoring

A ~ C : Representative symptoms of the seizure are presented. She described her numbness and motor weakness in her left limbs in detail during the seizure (A). She requested the care-giver to help her with skillfully removing the bedclothes (B) and put on her shoes by maintaining balance with the disabled left arm (C), which appeared “unlikely as experienced during the seizure”.

D : Simultaneous EEG showed no ictal activity in the lesioned left parietal or other areas. Posterior dominant and bilateral background activity were detected during the seizure. The findings were not concordant with the clinical symptoms.

による精神症状のアセスメントでは、気分症状や全般性不安症状は認めなかった。その後、公認心理師（MO）と患者、および公認心理師と母とのそれぞれ1対1での面接による心理社会的評価を行った。患者背景として、両親と同胞との4人暮らしの高校生で、成績は中等度であり、いじめを含む心的外傷体験の既往はなかった。一方で母子関係の悩みが存在し、患者は母の養育態度に対して過干渉と感じていた。病前性格は明るく社会的であったが、周囲へは遠慮がちで感情表出を控える傾向が

聴取された。前医での術後 20 日目より、病室でリストカットを繰り返していることも聴取された。

PNES の発生と慢性化を説明するために、生物学的・心理的・社会的視点から、「素因 (predisposing factors)」、「誘発因子 (precipitating factors)」、「持続因子 (perpetuating factors)」の 3 つを検討する病態モデルの有用性が示されている⁶⁻⁸⁾。本症例の心理師による面接結果を、この病態モデルにあてはめて以下の検討を行った (Fig. 4)。

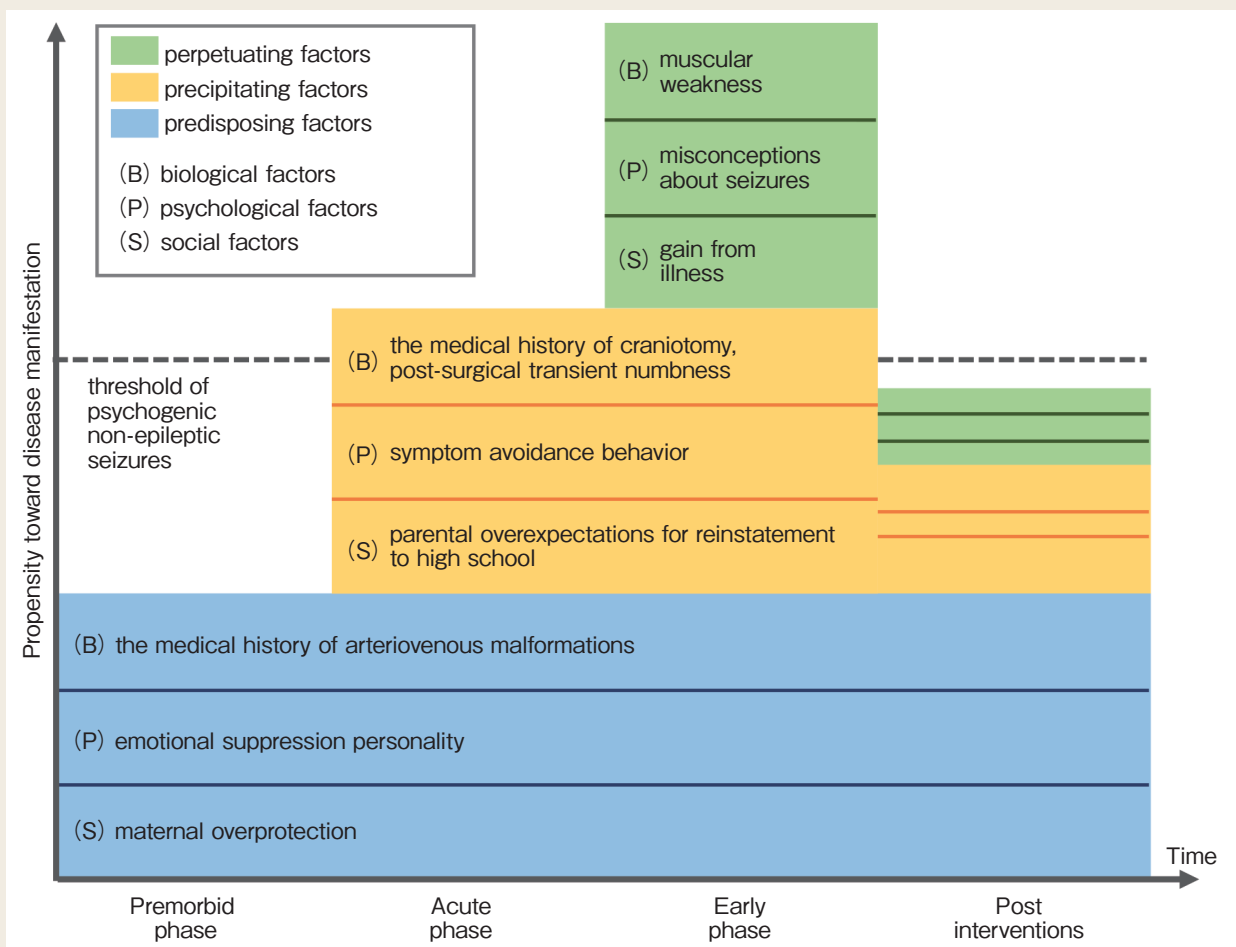


Fig. 4 Case formulation analysis with predisposing, precipitating, and perpetuating factors to explain development and disappearance of psychogenic non-epileptic seizures (PNES)

Predisposing factors were present from the premorbid phase before surgery in the patient. Precipitating factors occurred soon after craniotomy resulting in PNES in the acute phase. Perpetuating factors occurred soon after the acute phase so maintaining PNES in the early phase. Psychosocial evaluation and intervention successfully decreased both precipitating and perpetuating factors, dramatically reducing PNES. All predisposing, precipitating, and perpetuating factors consisted of biological, psychological, and social factors. Case formulation analysis is useful in psychosocial evaluation and intervention to treat PNES⁴⁾.

(1) 素因 (PNES の発生危険因子)

生物学的要因としては、器質的病変である脳動静脈奇形が挙げられた。心理的要因としては、術前からのネガティブな感情を抑制する傾向が挙げられた。社会的要因としては、母の過干渉が挙げられた。

(2) 誘発因子 (PNES 出現の契機)

生物学的要因としては、開頭術および術後の軽度知覚異常が挙げられた。心理的要因としては、リストカットに至るほどの不安や苦痛が挙げられた。社会的要因としては、家族からの早期復学への高い期待が挙げられた。

(3) 持続因子 (PNES の慢性化に関与する因子)

生物学的要因としては、左下肢を動かさなかったことによる廃用性の軽度筋力低下が挙げられた。心理的要因としては、現在の発作が手術により生じたという誤った病状把握が挙げられた。社会的要因として、発作の出現により家族や医療者からのサポートが増加する環境、すなわち疾病利得が挙げられた。

以上をまとめると、もともとあった患者の感情表出の苦手さと母子関係の葛藤に、術後の身体的変化や知覚異常への不安が加わり、本人なりにそれらに対処しようとした過程で PNES が出現し、さらには多様な生物・心理・社会的要因によって悪循環が生じ PNES が遷延したと推測された。

精神科を受診して併存する精神疾患がないことを確認した後、PNES への心理社会的アプローチを開始した。一般的に PNES へのアプローチでは、介入可能な「持続因子」を優先すべきとされている^{6, 9)}。

本症例でも「持続因子」のうち生物学的要因に対して、抗てんかん薬の減量を開始するとともに、理学療法士と作業療法士によるリハビリテーションで日常生活動作の向上を目指した。心理的要因に対しては、丁寧な PNES の病態説明を行うことで誤った疾患認知を修正しつつ、左上下肢のだるさが術後の右頭頂葉障害、すなわち手術操作に伴う右頭頂連合野損傷による感覚障害と、それに関連した二次性の運動機能低下である可能性を説明し、改善の期待を表すとともに病状への過度な不安を軽減させた。社会的要因に対しては、家族の発作に対する緊急的対応が PNES を助長する可能性を説明し、PNES に一喜一憂しない態度、対応を指導した。これらの包括的なアプローチにより、PNES は入院中に顕著に減少した。その後も心理師が面接の機会を持ち、医師から聞いた PNES の病状説明を患者自身の言葉で語り直してもらい、理解度の確認をするとともに自らの気持ちを言語化するスキルの向上を目指した。心理師の継続的関与は、PNES の診断受容を促進させるだけでなく、情緒面のサポートを拡充させる意図を含むため、社会的要因への介入にも相当

するものである。

4週間の入院を経て、独歩で自宅退院し、その1カ月後には復学した。復学直後と術後の脳血管撮影を勧められた時期にPNESが再度出現したものの、本人と家族で対処可能であった。その後7カ月間PNESは再発していない。

Ⅲ. 考 察

本症例は開頭術後に生じた心因性非てんかん発作に心理社会的アプローチが著効した1例である。そのメカニズムを以下に考察する。

1. PNESの病態モデル

PNESは、発生危険因子である「素因」を持つ個人に、出現の契機である「誘発因子」が加わることで発症するとされ、「持続因子」により繰り返されると説明する病態モデルがある^{6,8)}。つまり、「素因」のみではPNESを引き起こさないが、何らかのきっかけ（「誘発因子」）が加わるとPNESが発症し、さらに時間経過の中でPNESを繰り返させる要因（「持続因子」）が発生するために慢性化すると説明されている。このモデルの特徴は、「素因」、「誘発因子」、「持続因子」がさらに生物学的要因（biological）、心理的要因（psychological）、社会的要因（social）に分けられ、それぞれが影響を及ぼし合っているとする点である。各要因の例として、「素因」には精神疾患の家族歴やトラウマ体験が挙げられている⁹⁾。加えて、てんかんのないPNES症例266例を検討した研究では、22.3%の患者に脳の異常所見（脳波でのてんかん性異常8.7%、MRIでの異常9.7%、神経心理学的検査での異常9.7%）を認めたことから、既存の器質的異常がPNES発症に関与している可能性が示されている¹⁰⁾。また画像検査で片側性異常が指摘されたPNES患者60例のうち、71%で右半球の構造的病変または生理学的機能障害が存在していたことから、非優性半球機能の障害もPNES発症への関連があると推測されている¹¹⁾。「誘発因子」には頭部外傷やライフイベント、「持続因子」には抑うつ症状や疾病利得が該当する⁹⁾。これら3要因の整理は、①介入すべき点が明らかになる、②患者にとって理解しやすい説明が可能になる、③多職種の共通言語として連携を円滑にするなどのメリットがある^{6, 12, 13)}。

2. 外科治療後のPNESとその診断

周術期のPNES発症は婦人科、口腔外科、歯科領域で報告されているものの、いずれも少数例に留まっている¹⁴⁾。てんかんの外科治療後に発症するPNESが報告されているが¹⁵⁾、一般的な脳神経外科手術に関するPNESの報告は少ない。Reuberらは、てんかんセンターでPNESと診断された患者372例を後方視的に検

討し、17例（4.6%）が開頭術後のPNESの発症で、そのうち12例（70.6%）は真のてんかん発作とPNESの合併であったと報告している⁵⁾。PNESの確定診断にはVEEGが有用で、PNESに特徴的な発作症状や、発作時の脳波異常がないことを確認すれば診断精度が高まる²⁾。本症例の脳神経外科手術症例としての経過は特異的なものではなく、画像上は一次運動野、一次感覚野の損傷は認めておらず、当院来院時に疑われた右半身の運動障害も含め永続的な神経後遺症状を生じていなかった可能性が高い。しかし術後の物理的、心理的に不安定な状況下で、本人の症状受容や周囲の反応などが複雑に影響し、PNES発症に至ったものと推測された。

3. PNESの治療における本症例の特色

既報告では、PNESの診断3カ月後に27/54例（50.0%）で発作が消失し、そのうち24例（88.9%）は病状説明直後から発作が消失したと報告されている¹⁶⁾。つまり、適切な診断を伝えること自体に治療的意義があるというエビデンスが存在する。特に、病状説明に対して患者の納得が得られるか否かが治療予後に大きく影響することが報告されており^{4, 12)}、本症例においてはVEEGによるてんかんの否定、PNESの病態仮説に基づいた本人の腑に落ちる病状説明、PNESの「持続因子」への介入などがPNES消失に有効であったと推測される。「持続因子」への介入方法の検討には、知的水準を考慮することが望ましい。本症例のように、理解力が十分にある患者には精神療法的なアプローチが主体となるが、知的水準が低い患者には精神的負荷の軽減や生活環境の整備に重点が置かれる。一方で、PNES診断確定後も同発作が消失した症例は28.8%に留まるとされ、治療抵抗性に経過する症例は決して少なくない¹⁷⁾。またPNESの診断でてんかんが否定されても、35%の患者は年余にわたり抗てんかん薬継続を要すると報告されており、正しく診断されてもその後の抗てんかん薬中断は容易ではない¹⁸⁾。本症例では病態説明のみで発作消失し、その後6カ月をかけて抗てんかん薬を漸減中止できたが、必ずしも多くの症例で同様の結果を期待できない可能性も念頭に置くべきである。実臨床においては、臨床経過や発作症状がてんかんとして非典型的な場合に積極的にVEEGを実施し、専門的にPNESの診断確定されることが治療効果の点からも重要である。引き続き治療介入にあたっては、本人、家族を含めた病態理解、対応指導の重要性のみならず、効果的な介入点を明瞭化し得た心理社会的評価の有用性を強調したい。

IV. 結 語

脳動静脈奇形摘出術後の急性期にPNESを発症した1例を経験した。VEEGでてんかんを否定し、心理社会的評価に基づく本人と家族への病態説明を行うことで

発作は消失した。PNES 発症に至った経緯は脳神経外科臨床において特異的なものではなく、手術症例全般でも起こり得る病態と認識すべきである。PNES の診断には VEEG が重要であることは論をまたないが、その治療には本人と家族の正しい病態理解と受容が必須である。本症例は、PNES 治療において心理師を含む多職種アプローチの重要性を証明した教訓的な 1 例と思われる。

文献

- 1) Reuber M, Fernández G, Bauer J, et al: Diagnostic delay in psychogenic nonepileptic seizures. *Neurology* 58: 493-5, 2002
- 2) LaFrance WC Jr, Baker GA, Duncan R, et al: Minimum requirements for the diagnosis of psychogenic nonepileptic seizures: a staged approach: a report from the International League Against Epilepsy Nonepileptic Seizures Task Force. *Epilepsia* 54: 2005-18, 2013
- 3) Hingray C, Biberon J, El-Hage W, et al: Psychogenic nonepileptic seizures (PNES) . *Rev Neurol (Paris)* 172: 263-9, 2016
- 4) LaFrance WC Jr, Reuber M, Goldstein LH: Management of psychogenic nonepileptic seizures. *Epilepsia* 54: 53-67, 2013
- 5) Reuber M, Kral T, Kurthen M, et al: New-onset psychogenic seizures after intracranial neurosurgery. *Acta Neurochir (Wien)* 144: 901-7, 2002
- 6) Jimenez XF, Bautista JF, Tilahun BS, et al: Bridging a clinical gap in psychogenic nonepileptic seizures: Mental health provider preferences of biopsychosocial assessment approaches. *Epilepsy Behav* 56: 149-52, 2016
- 7) Reuber M: The etiology of psychogenic non-epileptic seizures: toward a biopsychosocial model. *Neurol Clin* 27: 909-24, 2009
- 8) Stone J, Carson A: Functional neurologic symptoms: assessment and management. *Neurol Clin* 29: 1-18, 2011
- 9) 谷口 豪: 心因性非てんかん性発作. *日本臨牀* 76: 1008-14, 2018
- 10) Reuber M, Fernández G, Helmstaedter C, et al: Evidence of brain abnormality in patients with psychogenic nonepileptic seizures. *Epilepsy Behav* 3: 249-54, 2002
- 11) Devinsky O, Mesad S, Alper K: Nondominant hemisphere lesions and conversion nonepileptic seizures. *J Neuropsychiatry Clin Neurosci* 13: 367-73, 2001
- 12) Baslet G, Seshadri A, Bermeo-Ovalle A, et al: Psychogenic Non-epileptic Seizures: An Updated Primer. *Psychosomatics* 57: 1-17, 2016
- 13) Wright CD, Tian AG, Billingsley AL, et al: A Framework for Understanding the Role of Psychological Processes in Disease Development, Maintenance, and Treatment: The 3P-Disease Model. *Front Psychol* 10: 2498, 2019
- 14) Lichter I, Goldstein LH, Toone BK, et al: Nonepileptic seizures following general anesthetics: a report of five cases. *Epilepsy Behav* 5: 1005-13, 2004
- 15) Asadi-Pooya AA, Asadollahi M, Tinker J, et al: Post-epilepsy surgery psychogenic nonepileptic seizures. *Epilepsia* 57: 1691-6, 2016
- 16) Duncan R, Razvi S, Mulhern S: Newly presenting psychogenic nonepileptic seizures: incidence, population characteristics, and early outcome from a prospective audit of a first seizure clinic. *Epilepsy Behav* 20: 308-11, 2011
- 17) Reuber M, Pukrop R, Bauer J, et al: Outcome in psychogenic nonepileptic seizures: 1 to 10-year follow-up in 164 patients. *Ann Neurol* 53: 305-11, 2003
- 18) O'Sullivan SS, Spillane JE, McMahon EM, et al: Clinical characteristics and outcome of patients diagnosed with psychogenic nonepileptic seizures: a 5-year review. *Epilepsy Behav* 11: 77-84, 2007