

# CTで診断された脳奇形発達障害乳幼児の夜間睡眠

芝垣 正光<sup>1)</sup>

CTで脳奇形と診断された10症例の発達障害乳幼児の夜間睡眠ポリグラフを調べた。年齢は5ヶ月—4歳10ヶ月、発達指数(DQ)の平均と標準偏差(SD)は46.7と17.9であった。健常児6名の年齢は9ヶ月—5歳1ヶ月、DQの平均とSDは100.5と13.5であった。症例1孔脳症児では、背景脳波が比較的振幅で、覚醒、NREM睡眠、REM睡眠に応じての変化がみられなかった。症例1、4脳梁欠損症児、症例6小頭症児では、睡眠紡錘波の出現がみられなかった。症例9小頭症児では、睡眠紡錘波が極めて少ない出現量であった(睡眠段階中0.23/分)。症例1,6では、中途覚醒時間が非常に多かった(記録時間の45.7%、47.0%)。脳奇形発達障害乳幼児の睡眠パターンの異常については、短時間記録の報告では明らかにされなかったもので、長時間記録の夜間睡眠検査の重要性が示唆される。

**Key words :** 脳奇形、発達障害乳幼児、CT、脳波、夜間睡眠パターン

## I. はじめに

発達障害児の原因の一つに先天性中枢(脳)奇形があげられる。出産児の1000人における脳奇形発達障害児の出現率は約8%である。旧知的障害児養護学校には数%、旧肢体不自由児養護学校にはそれより多くの脳奇形発達障害児が教育を受けていた。脳奇形を診断するには、脳のコンピュータ断層撮影(computed tomography,CT)を実施することによって確実になった。脳奇形発達障害乳幼児について、臨床脳波で検討した報告(Sutton, Bruce, & Schut, 1980)、サーカディアンリズムと睡眠が検討された報告(Monod & Guidasci, 1976)、睡眠パターンが検討された報告(芝垣, 1993)がある。しかし、いずれにしても脳奇形発達障害乳幼児の睡眠に関する研究は非常に少ない。

ところで、発達障害はさまざまな原因で生じる。発達障害の原因が明らかな場合は、発達障害の原因と眠りの特徴の因果関係が明確にされる。そこで、本報告では、CTによって発達障害の原因が明らかにされた脳奇形を伴う発達障害乳幼児を対象とした。そして、昼間の活動に影響する夜間の眠りを知るために、脳波を主としたポリグラフの測定を行い、

彼らの夜間睡眠パターンの特徴を調べることを目的とした。

## II. 方法

### 1. 被験児

対象児は10名の脳奇形発達障害乳幼児で、概要をTable1に示した。対象児の夜間睡眠脳波記録時における年齢の範囲は5ヶ月から4歳10ヶ月であった。津守・稲毛の乳幼児精神発達質問紙による発達指数(DQ)の平均と標準偏差(SD)は46.7と17.9であった。脳奇形の診断はCTによってなされ、補助的に気脳写、X線写真が用いられた。そして、孔脳症1名(症例1)、全前脳胞症1名(症例2)、脳梁欠損症(症例3,4)、アーノルド・キヤリ奇形1名(症例5)、小頭症5名(症例6-10)に分類された(Fig.1)。病因診断、病因診断根拠、妊婦分娩異常、在胎週数、生下時体重、男女、臨床経過、けいれん発作経験の有無、および定頭の有無を示した。

対照児は健常児で、9ヶ月女子1名、男子1名、1歳2ヶ月男子1名、1歳4ヶ月男子1名、4歳8ヶ月1名、5歳1ヶ月1名の計6名であった。彼らのDQの平均とSDは100.5と13.5であった。

1) 富山大学人間発達科学部

Table 1 Summary of Cases

Case No.	Diagnosis	Base of diagnosis	Labor and delivery	Gestation week:day	Sex Birth weight(g)	Clinical course	Experience of seizures	Head control year: month	Age of nocturnal recording year:month	DQ
1	porencephaly, microcephaly (head circumference; -6 SD), CP	porencephalon of occipital hemispheres	normal	37:0	F 1930	—	No	0:3 (-)	0:5	28
2	holoprosencephaly (lobar type)	distinct interhemispheric fissure, lobes, uncleft frontal poles, no olfactory bulbs and tracts, median cleft lip and palate	normal	40:1	F 3700	—	No	0:8 (-)	0:8	67
3	agenesis of corpus callosum, cerebellar hypoplasia	absence of corpus callosum	normal	39:1	F 2870	—	No	0:8 (+)	0:5	74
4	agenesis of corpus callosum	absence of corpus callosum	vacuum delivery	40:0	M 2920	—	8 times at 4 months	0:8, 0:9 (-) (+)	0:9	28
5	Arnold-Chiari malformation, meningomyelocele, hydrocephaly	vermis, pons, medulla oblongata and 4th ventricle in spinal tube	asphyxia at birth	39:3	F 2810	V-A shunt	at birth	4:10	64	
6	no abnormality except microcephaly	head circumference; -2 SD	normal	40:0	M 3450	—	No	0:3 (+)	1:1	53
7	ibid.	head circumference; -3 SD	normal	41:0	F 3750	—	No	0:3 (+)	1:11	55
8	ibid.	head circumference; -3 SD	asphyxia at birth	36:6	F 1750	—	at 2 and 4 days old	0:5 (+)	0:9	30
9	ibid.	head circumference; -2 SD	normal	—	F —	—	No	0:10 (+)	1:2	31
10	ibid.	head circumference; -3 SD	normal	38:5	M 1980	—	No	0:6 (+)	0:9	37

-2 (-3, -6) SD, head circumference less than two (three, six) times the standard deviation of the normal value; F, female; M, male; V-P ventriculoperitoneal; V-A ventriculoauricular; (+), positive; (-), negative; DQ, developmental quotient obtained by the Tsumori and Inage questionnaire method for infants and children; CP, cerebral palsy.

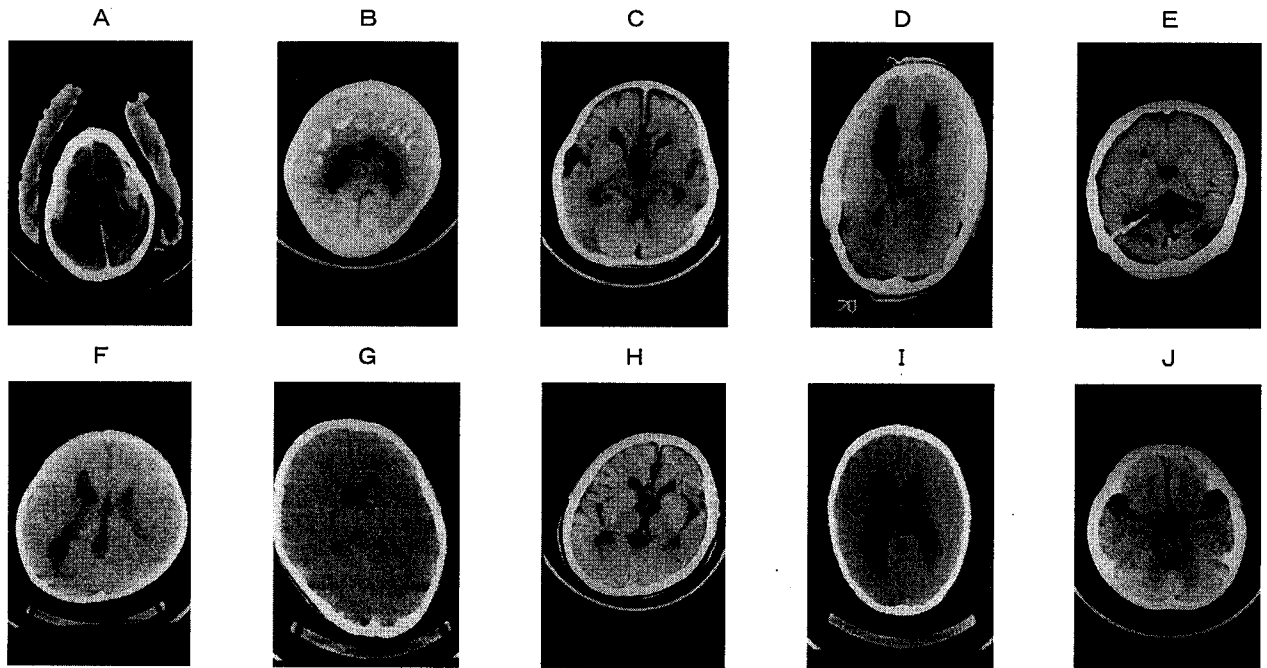


Fig. 1 10症例の脳奇形発達障害児のCT像。A：症例1、孔脳症。B：症例2、全前脳胞症。C：症例3、脳梁欠損症。D：症例4、脳梁欠損症。E：症例5、アーノルドキヤリー奇形、水頭症。F、G、H、I、J、症例6、7、8、9、10、小頭症。

## 2. 方法

被験児は入院時における検査の一つとして、夜間睡眠脳波記録検査を受けた。また、昼間ルーチン臨床脳波検査もを受けた。被験児は睡眠に影響を与える

ような投薬を受けていない。脳波記録は、睡眠導入剤を使用せずに各児の病室（温度25-26度、湿度50-70%）で授乳、あるいは夕食（18時前後）後から翌朝自然覚醒するまで連続記録された。脳波記

録と同時に各児の様子を詳しく知るために、眼球運動、心電図、呼吸曲線、オトガイ筋電図が記録された。なお、紙送り速度は15mm/秒、脳波記録は時定数を0.3秒、増幅感度を5mm / 50 $\mu$ Vとして行った。覚醒、睡眠段階1-4 (non-REM; NREM睡眠)、REM (rapid eye movement) 睡眠は20秒ごとに Rechtschaffen and Kales のマニュアル (1968) にしたがって分類された。F3-A1, C3-A1, P3-A1, O1-A1 (あるいはF4-A2, C4-A2, P4-A2, O2-A2) 導出の睡眠脳波をFFT処理したデルタ成分と紡錘波成分のパワー値の一夜の変動について、NREM睡眠時における最大の峰とREM睡眠時における最小の谷とのパワー値から生じるリズムについて検討した。すなわち、一夜の睡眠中の全ての脳波周波数を調べて、例えばデルタ波 (0.5-3Hz) と紡錘波 (11-14Hz)

が多く出現していれば、それに応じて周波数の山が高く描きだされる鳥瞰図法とよばれる方法である。

### III 結 果

#### 1. 睡眠脳波パターンの異常

##### 孔脳症

症例1 背景脳波 (Fig. 2) は比較的低振幅で、覚醒、NREM睡眠、REM睡眠に応じてほとんど変化がみられなかった。鳥瞰図法によるデルタ波と紡錘波のリズムがみられなかった (Fig. 3)。これらの3つの相は、眼球運動、呼吸曲線、オトガイ筋電図によって分類された。後頭部脳波の振幅が前頭、中心部のものと比べて若干低かった。(睡眠) 紡錘波は出現しなかった。Asymmetryと局在性のスパイクがみられた (Table 2)。

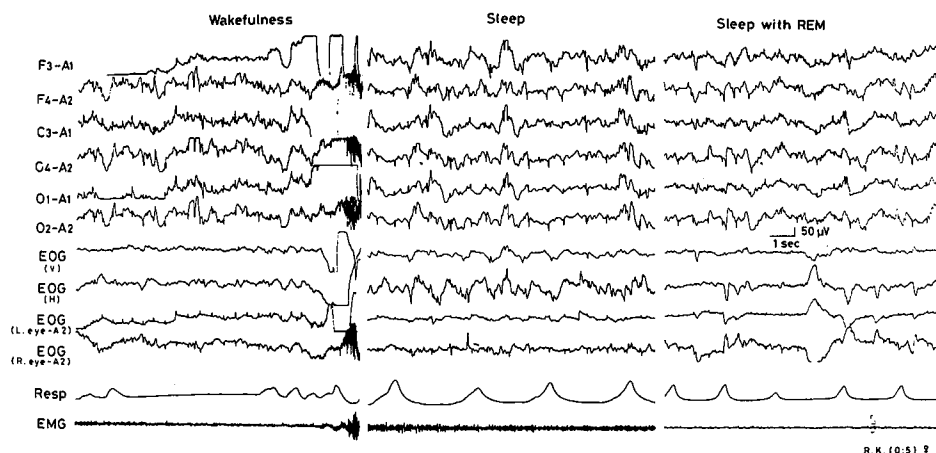


Fig. 2 背景脳波が覚醒、NREM睡眠、REM睡眠に応じて変化がみられない症例1 (R.K., 5ヶ月、女子、DQ=28、孔脳症)。

Table 2 Daytime routine clinical and nocturnal sleep EEG

Case No.	Daytime routine clinical EEG	Nocturnal sleep EEG
1	Abnormal: asymmetry, localized spike, fast wave superimpose	Neither characteristic EEG patterns of all stages
2	Normal	Characteristic EEG patterns of all stages
3	Within normal limit: minimal attenuation	Ibid.
4	Abnormal: localized fast wave superimpose	No spindles, characteristic EEG patterns of stages W, 3, 4 and REM
5	Abnormal: slow wave dysrhythmia	Characteristic EEG patterns of all stages
6	Abnormal: fast wave superimpose	No spindles, characteristic EEG patterns of stages W, 3, 4 and REM
7	Abnormal: high voltage fast wave superimpose	Characteristic EEG patterns of all stages
8	Within normal limit: minimal attenuation	Ibid.
9	Abnormal: fast wave superimpose	Ibid.
10	Within normal limit: left at small spike	Ibid.

### 全前脳胞症

症例2 覚醒、睡眠段階1-4、REM睡眠に応じて脳波パターンの変化がみられた。紡錘波は出現していた (Table 2)。鳥瞰図によるデルタ波と紡錘波のリズムがみられた。

### 脳梁欠損症

症例3 覚醒、睡眠段階1-4、REM睡眠に応じて脳波パターンの変化がみられた (Table 2)。紡錘波が出現していた。鳥瞰図によるデルタ波と紡錘波の変化がみられた (Fig. 4)。

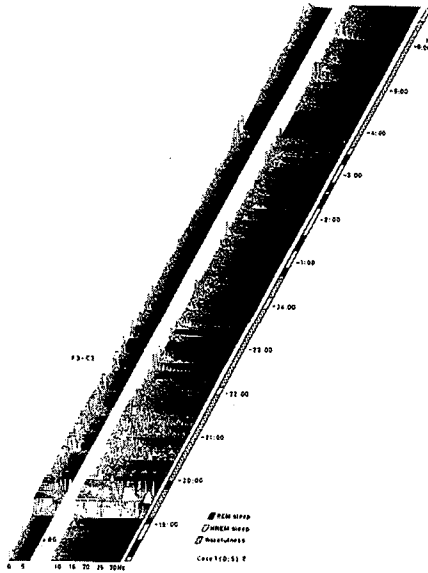


Fig. 3 デルタ波と紡錘波のリズムがみられない症例1 (R.K., 5ヶ月、女子、DQ=28、孔脳症)。

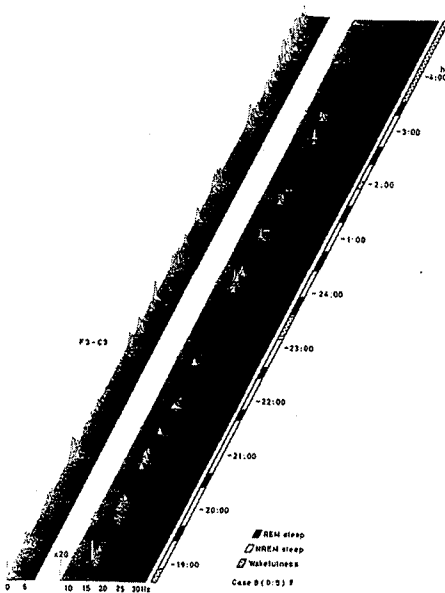


Fig. 4 デルタ波と紡錘波のリズムがみられる症例3 (M.S., 5ヶ月、女子、DQ=74、脳梁欠損症)。

症例4 紡錘波の出現はみられなかった。脳波パターンは、睡眠段階1, 2に応じての変化がみられなかったが、覚醒、睡眠段階3, 4、REM睡眠に応じての変化はみられた。局在性の鋭波が出現していた (Table 2)。

### アーノルド・キアリ奇形

症例5 覚醒、睡眠段階1-4、REM睡眠に応じて脳波パターンの変化がみられ、紡錘波は出現していたが、デルタ活動では律動異常がみられた (Table 2)。鳥瞰図によるデルタ波と紡錘波のリズムがみられた。

### 小頭症

症例6では、紡錘波の出現がみられなかった。症例9では、紡錘波の出現はみられたが、きわめて少ない出現量であった (0.23/分)。これらの2症例の睡眠パターンでは、睡眠段階1, 2に応じての変化がみられなかったが、覚醒、睡眠段階3, 4、REM睡眠に応じての変化はみられた。症例7-10では、覚醒、睡眠段階1-4、REM睡眠に応じての変化がみられた (Fig. 5)。また、紡錘波が出現していた。ゆえに、これらの症例では、鳥瞰図によるデルタ波と紡錘波のリズムがみられた。症例9では、背景脳波に異常速波の重畳、症例7では異常異常高振幅速波の重畳、症例8では局在性の多棘・徐波がみられた (Table 2)。

### 健常児

6名中全ての脳波パターンに覚醒、睡眠段階1-4、REM睡眠に応じての変化がみられた。鳥瞰図によるデルタ波と紡錘波のリズムがみられた。

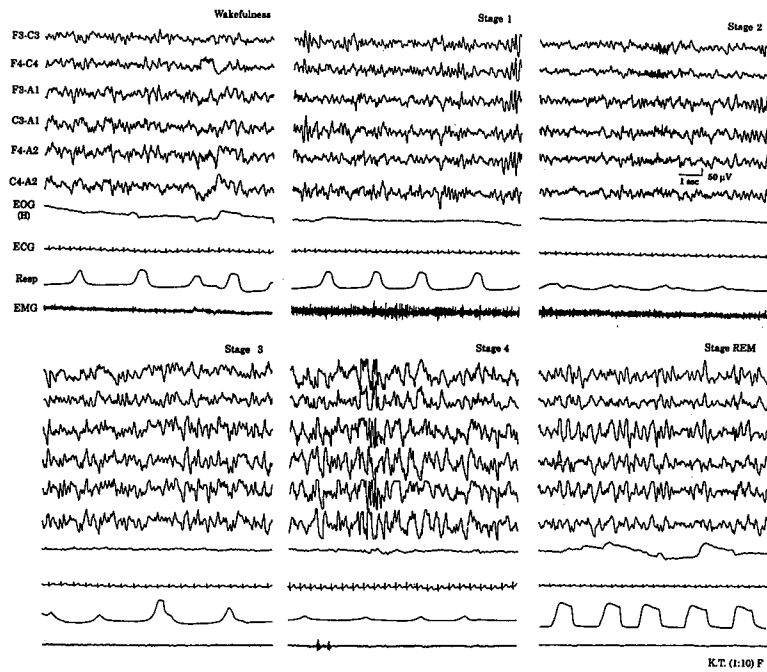


Fig. 5 背景脳波が覚醒、NREM睡眠、REM睡眠に応じて変化がみられた症例7 (K.T., 1歳10ヶ月、女子、DQ=55、小頭症)。

## 2. 睡眠サイクルの異常

Fig. 6は各症例について、一夜における中途覚醒、NREM睡眠、REM睡眠の経過をまとめたものである。孔脳症の症例1 (R.K.)、小頭症の症例6 (T.O.)

の中途覚醒時間はそれぞれ一夜の脳波記録時間の45.7%、47.0%で、残りの症例と健常児 (Fig. 7) に比べて中途覚醒が非常に多かった。

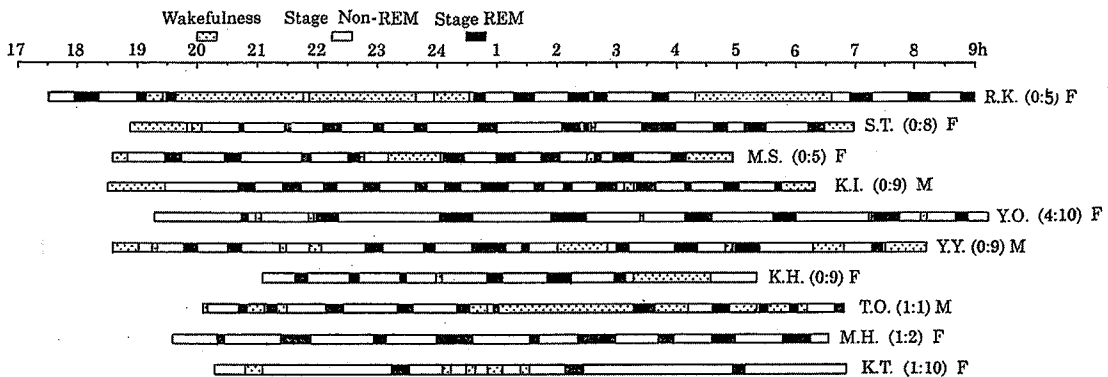


Fig. 6 10症例の脳奇形発達障害児について、一夜にける覚醒、NREM睡眠、REM睡眠の経過図

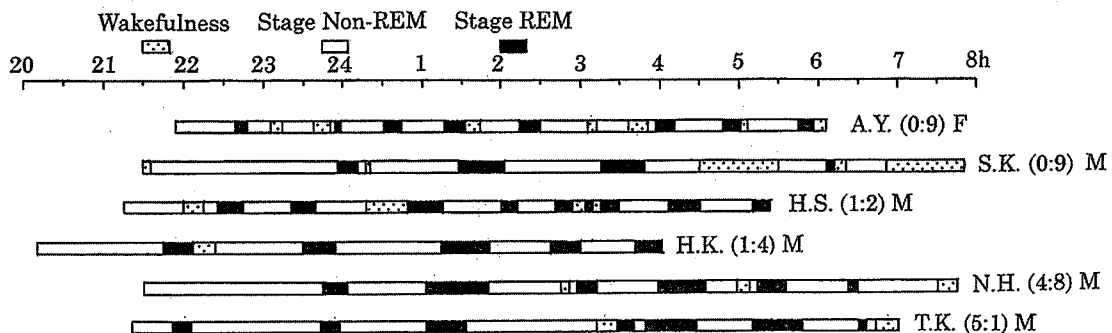


Fig. 7 正常児について、一夜にける覚醒、NREM睡眠、REM睡眠の経過図

#### IV 考察

睡眠にはREM睡眠とNREM睡眠があり、交互に出現する。NREM睡眠は吻側縫線核のセロトニンニューロンが、REM睡眠には橋青斑核のノルアドレナリンニューロンが関係していることが知られている。また、睡眠と覚醒の交代には、視床下部および脳幹網様体系が関係していることが分かっている。本報告の症例では、大脳半球から下位の間脳、中脳、橋は存在していたので、覚醒、NREM睡眠、REM睡眠は出現していた。

全前脳胞症児の睡眠時ポリグラフについては、Watanabe, Hara, and Iwase (1976) の報告があり、本症のように重症な脳奇形発達障害乳幼児においても発達がみられるし、またNREM睡眠、REM睡眠の周期性が保たれている。本報告のlobar型全前脳胞症症例2ではNREM睡眠、REM睡眠が頻回出現していた。このことは、本報告の症例が生後明らかに発達したことを示唆していると思われる。

Monod and Guidasci (1976) によると、脳奇形を伴う新生児では、正常新生児に比べて覚醒時間が多い。本症例の孔脳症の症例1、小頭症の症例6においても、終夜睡眠中の中途覚醒時間が極端に多かった。本症例では、24時間の睡眠、覚醒が調べられていないので、断定はできないが、脳奇形発達障害乳幼児の中には覚醒時間の多い者がいることが示唆された。

孔脳症では、覚醒、NREM睡眠、REM睡眠に応じて脳波パターンの変化がみられなかった。しかし、これらの3つの相は、眼球運動、呼吸曲線、オトガイ筋電図によって分類が可能であった。脳奇形発達障害乳幼児の睡眠脳波を調べるには、ポリグラフで行うことが重要であることが示唆された。

脳奇形発達障害乳幼児の睡眠脳波パターン、睡眠サイクル、デルタ波と紡錘波によるリズムについては、短時間記録の報告では明らかにされなかったもので、長時間記録の夜間睡眠検査の重要性が示唆された。

稿を終えるにあたり、症例の子どもたちに感謝いたします。終始ご指導いただきました愛知県コロニー研究所清野茂博部長に感謝いたします。また、症例をご紹介して下さった中央病院渡辺一功、袴田亨、原紀美子、熊谷俊幸、竹内達夫の諸先生に感謝いたします。

#### V 文献

- Monod, N. & Guidasci, S. (1976) Sleep and brain malformation in the neonatal period. *Neuropadiatrie*, 7, 229-249.
- Rechtschaffen, A. & Kales, A. eds. (1968) *A Manual of Standardized Terminology, Techniques and Scoring System for Human Subjects*. Washington, D.C., Public Service, U.S. Government Printing Office.
- 芝垣正光 (2003) 脳奇形を伴う知的障害乳幼児の夜間睡眠の特徴. 富山大学教育学部紀要, 57, 191-200.
- Sutton, L.N., Bruce, D.A., & Schut, L. (1980) Hydrencephaly, versus maximal hydrocephalus, and important clinical distinction, *Neurosurgery*, 6, 34-38.
- Watanabe, K., Hara, K. & Iwase, K. (1976) The evolution of neurophysiological features in holoprosencephaly. *Neuropadiatrie*, 7, 19-41.