発作時頭皮脳波・発作症候と画像所見の乖離がみられた 内側側頭葉てんかんの1例

鷺見 佳泰¹⁾, 村元 恵美子¹⁾, 中村 博彦¹⁾, 溝渕 雅広²⁾, 白石 秀明³⁾, 白居 礼子⁴⁾

1) 中村記念病院脳神経外科, 2) 同 神経内科, 3) 北海道大学大学院医学研究科小児科学分野, 4) 同 核医学分野

Discrepancy between Ictal Scalp EEG and Neuroimaging Findings in Mesial Temporal Lobe Epilepsy: A Case Report

Yoshihiro Sumi, M.D.¹⁾, Emiko Muramoto, M.D.¹⁾, Hirohiko Nakamura, M.D.¹⁾,
Masahiro Mizobuchi, M.D.²⁾, Hideaki Shiraishi, M.D.³⁾, and Reiko Usui, M.D.⁴⁾

1) Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital, 2) Department of Neurology, Nakamura Memorial Hospital, 3) Department of Pediatrics, Hokkaido University Graduate School of Medicine, 4) Department of Nuclear Medicine, Hokkaido University Graduate School of Medicine

Introduction : The purpose of this study was to evaluate the epileptogenic zone in a patient with unilateral hippocampal sclerosis, whose ictal discharges on scalp EEG indicated onset on the contralateral side.

Case presentation : A 34-year-old man had intractable complex partial seizures since six years of age. His seizures presented with automatism of both arms with mild dystonia on the right side. Scalp ictal EEG revealed rhythmic theta waves over the left anterior temporal region, indicating left temporal lobe origin. On the contrary, neuroimaging findings of right hippocampal sclerosis on MRI, hypo-metabolism in the right temporal lobe on ¹⁸F-FDG-PET, and hypo-accumulation in the right mesial temporal lobe on ¹¹C-FMZ-PET strongly support right mesial temporal lobe origin. Invasive EEG monitoring revealed that ictal discharges originated from the right mesial temporal lobe and immediately propagated to the left temporal lobe. The patient became seizure-free after selective right amygdalo-hippocampectomy.

Conclusion : Although this case showed a discrepancy between neuroimaging and other findings such as semiology and scalp ictal EEG, consistent findings on both MRI and PET should be a strong indicator in deciding the side of surgery.

(Received December 28, 2011 ; accepted February 16, 2012)

Key words : temporal lobe epilepsy, hippocampal sclerosis, ictal monitoring, subdural electrode, selective amygdalo-hippocampectomy

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 21 : 736-740, 2012

緒 言

難治性側頭葉てんかんの外科治療を考慮する場合、焦点の側方性の診断が重要である。通常、発作症候、頭皮脳波・MRI・核医学検査などの非侵襲的検査の結果がす

べて一致する場合には、一期的に側頭葉切除術を行うことが可能である¹⁾³⁾⁵⁾が、それ以外の場合には、頭蓋内電極を留置する侵襲的検査を行い、側方性の診断を行う必要がある。

今回われわれは、MRI にて一側の海馬硬化を認める

連絡先: 鷺見佳泰, 〒060-8570 札幌市中央区南1条西14丁目 中村記念病院脳神経外科

Address reprint requests to: Yoshihiro Sumi, M.D., Department of Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital, Minami 1-jo Nishi 14-chome, Chuo-ku, Sapporo-shi, Hokkaido 060-8570, Japan

Fig. 1 EEG recordings by scalp and sphenoidal electrodes

Inter-ictal EEG (A) shows independent spikes over bilateral (right: ⇒, left: →) temporal regions but predominantly on the left side. Ictal EEG (B) shows rhythmic theta waves from the left sphenoidal electrode (underline) and anterior temporal region (F7: dotted line), propagating to the left hemisphere.

が、発作症候、発作時頭皮脳波では反対側側頭葉からの発作起始が考えられた症例に対し、頭蓋内電極（硬膜下電極）を留置。発作焦点を確認後、選択的扁桃体海馬切除術を施行し、良好な結果を得たので報告する。

症例提示

患 者：34 歳，右利きの男性。

6 歳時に数分の意識減損発作が出現した。A 脳神経外科病院で「てんかん」と診断され抗てんかん薬が開始された。その後，B 病院小児科に通院し，各種薬物治療を受けるが，発作頻度は月に 4～8 回と難治性に経過したため，外科治療を目的に当院へ紹介となった。

1 歳で熱性けいれんの既往があるが重積ではない。出生・発育は特に異常なく，てんかんの家族歴もなかった。

頭皮長時間脳波ビデオモニタリングは 10-20 法による電極と両側蝶形骨誘導電極を用いて，3 回の発作を捕捉した。発作症状は，明らかな前兆はみられず，突然，意識減損して動作停止後，物を咀嚼するような口部自動症が出現。やや顔を左に向けて，左上下肢の軽い自動症を認めるが，右上下肢の動きは少なく，軽度のジストニアを認めた。発作の持続時間は 1～2 分であった。発作

間欠期脳波 (Fig. 1A) では，右または左蝶形骨誘導 (SP)，前側頭部 (aT) に独立した棘波を認めるが，左側頭部の頻度が多かった。発作時脳波 (Fig. 1B) は 3 回記録することができ，いずれも左 SP，F7 優位の律動性 θ 波が出現し，T9，さらに左半球に拡大していくが，左半球優位に経過した。脳磁図は独立した双極子が両側側頭葉に推定された。

脳画像検査は，MRI (Fig. 2A) では FLAIR，T2 強調画像で右海馬に高信号を伴う萎縮所見 (右海馬硬化) を認めるが，左海馬は変化がなかった。 ^{123}I -IMZ-SPECT (Fig. 2B) は右優位の両側側頭葉の集積低下を認めた。 ^{18}F -FDG PET (Fig. 2C) は右側頭葉の代謝低下， ^{11}C -flumazenil PET (Fig. 2D) は右側頭葉内側の集積低下を認めた。

神経心理検査は，WAIS-III で full scale IQ: 80，verbal IQ: 82，performance IQ: 82 と軽度の知能低下を認めた。WMS-R は general: 86，verbal: 83，visual: 101 と言語性記憶の低下を認めた。プロポフォルを用いたワダテスト⁴⁾では，言語優位側は左半球であり，記憶についても右注入時に全課題再生可能であるのに対し，左注入時には 30% の再生しかできず，左優位であることが確認できた。

Fig. 2 Neuroimaging findings

MRI (A) demonstrates right hippocampal volume loss and high signal intensity on T2-weighted (upper) and FLAIR (lower) images. ^{123}I -IMZ-SPECT (B) shows hypo-accumulation bilaterally but predominantly in the right temporal lobe. ^{18}F -FDG-PET (C) depicts hypo-metabolism in the right temporal lobe. ^{11}C -FMZ-PET (D) demonstrates hypo-accumulation in the right mesial temporal lobe. These consistent findings indicated epileptogenic focus in the right mesial temporal lobe structures.

以上のように非侵襲的検査では、画像診断(MRI, PET/SPECT)は右側頭葉内側の異常を示唆しているが、発作症候や発作時脳波は、反対側の可能性を示唆している。そこで正確な側方性の診断のため、頭蓋内電極留置を行い、発作焦点の確認を行うこととした。

両側側頭葉内側、底面、外側の硬膜下に電極を留置し長時間ビデオ脳波モニタリングを行った。14日間記録し、複雑部分発作が2回捕捉されたが、右側頭葉内側に律動性棘波が先行し、早期に左側頭葉内側へ伝播し、その後に発作症候が発現し、頭皮脳波の変化が出現することが確認できた。その後も左側頭葉の棘波、棘徐波が最後まで残存する傾向があった(Fig. 3)。この結果より、画像検査、発作症候、発作時頭皮脳波が矛盾なく説明可能となり、右海馬が発作焦点であると診断できたため、選択的右海馬扁桃体摘出術を行った。病理所見は右海馬CA1領域の錐体細胞脱落とグリオシスを認め海馬硬化所見に矛盾しなかった。術後、抗てんかん薬は服薬継続中であるが、3年間発作はなく、抗てんかん薬を減量

中である。

症例のまとめ

各検査のまとめと側方性を示す根拠をTable 1に示す。画像検査は右側頭葉内側起始を、発作時症候・脳波は左側頭葉由来を示唆していたが、硬膜下電極により右海馬が焦点であることを確認した。術後発作は消失している。

考 察

難治性側頭葉てんかん症例において、1年間における内科治療での発作消失率は8%であるのに対して、外科治療のそれは58%であり外科手術による治療効果は確立されている⁶⁾。外科治療において、手術側すなわちてんかんの焦点側の診断は重要であり、非侵襲的検査である発作症候、脳波、脳磁図、MRI、核医学検査により推

Fig. 3 Intracranial electrode EEG monitoring

Ictal discharges originate from the right mesial temporal lobe and immediately propagate to the left mesial temporal lobe, resulting in ictal automatism.

Table 1 Summary of non-invasive examinations

	Laterality
Semiology	Left
Interictal EEG	Bilateral (R<L)
Ictal EEG	Left
MEG	Bilateral
MRI	Right
PET/SPECT	Right

定される焦点側が一致する場合、頭蓋内電極留置を経ずに手術することが可能である¹⁾³⁾⁵⁾。しかしすべての結果が一致しない症例もあり、まれに画像所見が示唆した焦点側に対して、発作症候および脳波で示唆される焦点が反対側である症例が報告されている。Mintzer ら²⁾は、一側海馬硬化のある患者において、発作時頭皮脳波の焦点側が反対側であった場合でも、頭蓋内電極を用いることでおおむね良好な治療成績が得られ、また、海馬硬化側が焦点側であり、PET 所見も同様であると述べている。われわれの症例も、海馬硬化側に PET/SPECT の異常所見を認め、頭蓋内電極で、海馬硬化側の発作焦点が確認され、これを切除することで、発作の消失をみている。このように、頭皮脳波所見との不一致があっても、MRI で海馬硬化があり、かつ PET/SPECT 所見の一致する場合には、外科治療が有用である可能性がある。

現在のところ、これら乖離のある症例に対しては、頭

蓋内電極を用いた侵襲的検査が必要と考えるが、これを省略することが可能か否か、今後さらなる症例の蓄積と検討が必要と思われる。

文 献

- 1) Kilpatrick C, Cook M, Kaye A, Murphy M, Matkovic Z: Non-invasive investigations successfully select patients for temporal lobe surgery. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* **63**: 327-333, 1997.
- 2) Mintzer S, Cendes F, Soss J, Andermann F, Engel J Jr, Dubeau F, Olivier A, Fried I: Unilateral hippocampal sclerosis with contralateral temporal scalp ictal onset. *Epilepsia* **45**: 792-802, 2004.
- 3) Sperling MR, O'Connor MJ, Sayakin AJ, Phillips CA, Morrell MJ, Bridgman PA, French JA, Gonatas N: A noninvasive protocol for anterior temporal lobectomy. *Neurology* **42**: 416-422, 1992.
- 4) Takayama M, Miyamoto S, Ikeda A, Mikuni N, Takahashi JB, Usui K, Satow T, Yamamoto J, Matsuhashi M, Matsumoto R, Nagamine T, Shibasaki H, Hashimoto N: Intracarotid propofol test for speech and memory dominance in man. *Neurology* **63**: 510-515, 2004.
- 5) Thadani VM, Williamson PD, Berger R, Spencer SS, Spencer DD, Novelly RA, Sass KJ, Kim JH, Mattson RH: Successful epilepsy surgery without intracranial EEG recording: Criteria for patient selection. *Epilepsia* **36**: 7-15, 1995.
- 6) Wiebe S, Blume WT, Girvin JP, Eliasziw M: Effectiveness and Efficiency of Surgery for Temporal Lobe Epilepsy Study Group: A randomized, controlled trial of surgery for temporal-lobe epilepsy. *N Engl J Med* **345**: 311-318, 2001.

発作時頭皮脳波・発作症候と画像所見の乖離がみられた内側側頭葉てんかんの1例

鷲見 佳泰 村元恵美子 中村 博彦
溝渕 雅広 白石 秀明 臼居 礼子

症例は34歳の男性。6歳時に数分間意識減損する発作で初発し、難治性に経過した。発作は、軽度右ジストニアを伴う両上肢自動症で、発作時頭皮脳波は左前側頭部に律動性 θ 波が出現し、左側頭葉起始を示唆した。一方、MRIは右海馬硬化、 ^{18}F -FDG PETは右側頭葉代謝低下、 ^{11}C -FMZ PETは右側頭葉内側の集積低下を認め、右側頭葉起始を示唆した。頭蓋内脳波記録は、発作発射が右側頭葉内側に起始し早期に左側頭葉へ移行して左優位に経過した。選択的右扁桃体海馬切除術を行い、術後発作は消失した。頭皮脳波・発作症候と画像所見が一致しない例でも、MRI・PET所見が一致している場合は、手術側の決定に有用である。

脳外誌 21: 736-740, 2012

Editorial Comment

Evaluate! Evaluate! Evaluate! 術前診断を諦めるな!

東北大学大学院てんかん学分野 中里信和

側頭葉てんかんは、数あるてんかん外科の中でも最も良好な手術成績が得られる対象として知られている。何種類もの抗てんかん薬をいたずらに何年もかけて試すのではなく、治療の早い段階で外科治療の適応を検討すべきといわれているほどである。しかしながら、てんかんの外科治療を実施している専門施設以外の一般の医師は、外科治療は「最終手段」と考えがちであり、そのために実際の手術が実施されるまでに初発から10数年を経過する例もまれではない。一般医からは「どのようにして手術適応例を決めればよいのか」という質問が多いが、てんかん専門の医師の答えは「一般の外來診療で手術適応を決めるのは不可能であり、いったんは早く専門施設に紹介を」となるのである。その理由は、てんかんの手術適応を決定する単一の検査法が存在しないためである。複数の重要な検査を統合しなければならぬところに、てんかんの術前診断の難しさ

がある。

本症例では、発作時の頭皮脳波所見と発作症候が左側の起始を示唆したものの、MRIでは右側の海馬萎縮があり、PET所見では右側頭葉の糖代謝低下とFMZと右側頭葉内側への集積を認めた。最終的に頭蓋内電極を留置することによって、発作が右側頭葉内側に始まり早期に左側に移行することが確かめられた。右側の選択的扁桃体海馬切除術にて、発作は消失した。このように複数の術前診断の結果に乖離が認められても、頭蓋内電極にて切除側を最終決定できた例は過去にも報告がある。著者らが示唆するように、一側の海馬硬化所見は他の検査項目よりも重要性が高いようである。何よりも、主治医団が諦めずに術前評価を遂行したことに対して賛辞を贈りたい。術前診断は繰り返し行い、切除術を諦めるな、である。