

報 告

前頭葉背外側面の脳梗塞による超皮質性運動失語

東京女子医科大学医学部神経内科学

内山由美子・岩田 誠・内山真一郎

(受理 平成25年9月20日)

A Case of Transcortical Motor Aphasia Caused by a Lesion in the Left Dorsolateral Frontal Lobe

Yumiko UCHIYAMA, Makoto IWATA and Shinichiro UCHIYAMA

Department of Neurology, Tokyo Women's Medical University School of Medicine

A 47-year-old right-handed male without history of any other left-handed members in his family was admitted to our hospital. His speech was telegraphic and dysprosodic, showing foreign accent syndrome with normal articulation. His repetition and comprehension were well preserved. He experienced greater difficulty in writing and reading Kana words than Kanji words. These were considered to be signs of transcortical motor aphasia. Cranial MRI revealed a lesion affecting the posterior part of the left middle frontal gyrus, superior part of the left inferior frontal gyrus (Brodmann's area 6/9/44) and the adjacent white matter. Neither MRI nor SPECT revealed any abnormality of the right cerebral hemisphere. Consequently, the lesion in the left dorsolateral frontal lobe, especially Brodmann's area 9/44, was thought to cause the telegraphic speech and grammatical errors without abnormal lateralization of the cerebral hemisphere. Telegraphic speech is indicative of the dysfunction of sentence production due to the impairment of morphology, despite the good grammatical comprehension of the sentence. Brodmann's area 9/44 may play a role in the correct selection of particles when forming sentences. Therefore, the grammatical output during sentence production must be studied separately from the grammatical comprehension of sentences.

Key Words: telegraphic speech, dysprosody, transcortical motor aphasia, Brodmann area 44, Brodmann area 9

緒 言

電文体発話は失文法の最も際立った形で、Broca失語の回復期にみられるが、日本語では典型的な電文体発話や文法障害はまれであり^{1,2)}、本邦での電文体発話を主徴とする失文法症例の報告も少ない^{3,4)}。また、電文体発話は、言語機能の半球側性化が変則的な場合に出現する可能性が示唆されている^{2,5,6)}。

今回我々は、半球側性化異常がないと考えられる右手利き症例で、左半球病変の超皮質性運動失語を生じ、電文体発話とforeign accent syndromeを呈した症例を経験したので報告する。

症 例

患者：47歳右手利き男性。4年生大学卒業、社会保険労務士。利き手の矯正歴はない。近親者もすべて右手利きである。

主訴：言葉がわからない。

既往歴：1978年慢性糸球体腎炎で透析導入となり、1979年実兄より腎移植を受け、以後免疫抑制薬と副腎皮質ステロイドを投与されていた。40歳頃より高血圧、高脂血症を指摘されていた。

現病歴：某年2月28日起床時より声が出せず、TVの字幕も、1文字ずつ読めたが文章の理解が不能であった。書字では、「私は話せない」が「こはは話しない」、「わからない」が「わらないに」「わけなる」など仮名文字で目立つ錯書がみられ、同日当科入院となった。

入院時所見・検査結果：入院時、腹部に腎移植のための手術痕があるほかは一般身体所見に異常はなく、神経学的に意識は清明で、運動障害、感覺障害など異常所見は認めなかった。

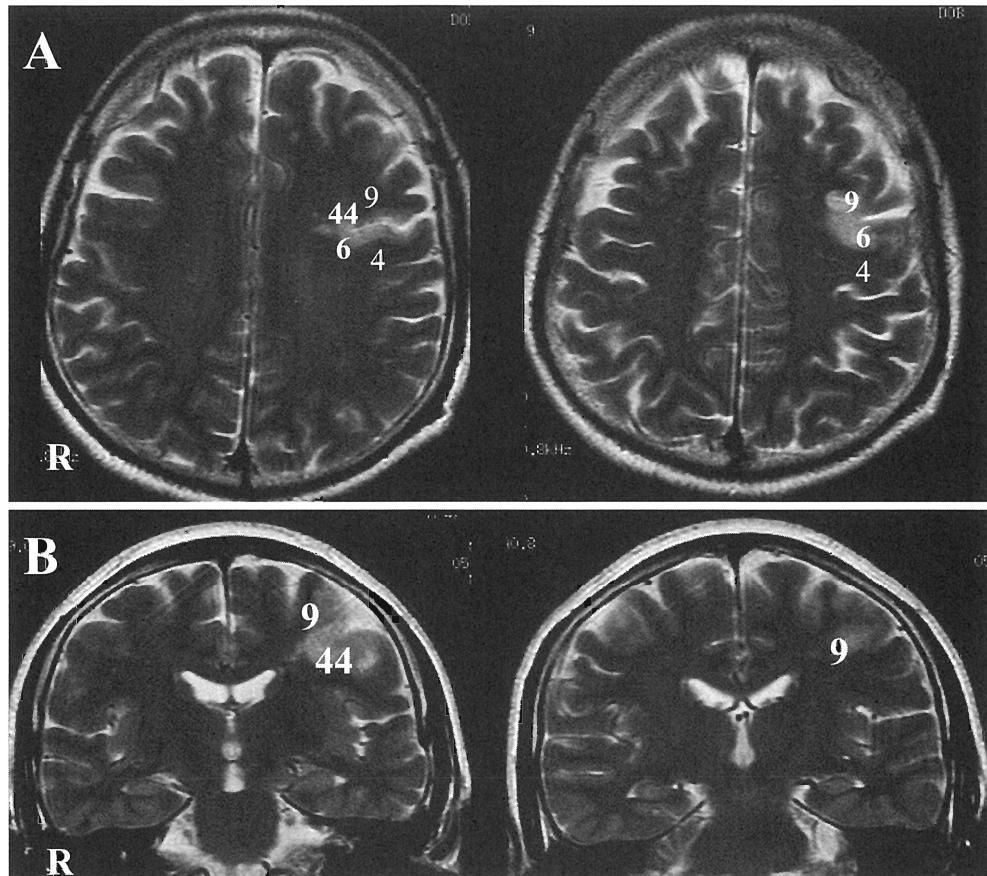


Fig. 1 MRI axial (A) and coronal (B) images
Numbers are Brodmann's area of the lesion.

第5病日の会話を以下に示す。「(今日は何曜日ですか)月曜日。(ここはどこですか)東京女子医大。(こちらにきたことは)え、あのー、20年以來。(何の病気で)えー、腎臓、おー、腎移植。(移植腎はどなたからうけましたか)んー、兄。(今は透析されていますか)え、ん…できません」()内は検者の言葉である。発語は非流暢で、主に単語の羅列で助詞や助動詞は少なく電文体発話を示し、軽度の喚語困難がみられた。音の歪みなどの発語失行的要素や構音障害はなく、1音節ずつを明確に発音し音節間の強弱がはっきりせず、その結果単語は平板なイントネーションとなり、dysprosodyを認めた。ある程度回復した後も、単語は言えても助詞が思いつかず会話に時間がかかる、と訴えていた。dysprosodyも持続し、「まるで中国人のようなしゃべり方だ」という自覚、医療者および見舞客からの指摘もあり、foreign accent syndromeがみられた。物品呼称は可能で、音韻性錯語があり、明らかな意味理解障害はなく、5文節文までの復唱は可能。書字では錯書がみられ、特に仮名の書きにくさが目立った。読字では、

連続した仮名の読みは困難であった。軽度の口部顔面失行がみられたほか、明らかな失行、失認は認めなかった。

同年3月4日の頭部MRI(Fig.1)を示す。Brodmann's area (BA) 6, 9にあたる左中前頭回後部、前頭葉弁蓋部を除くBA 44にあたる下前頭回上部、皮質下白質に梗塞巣を認めた。同年3月15日の頭部99mTc HMPAO SPECT (Fig.2)では梗塞と同部位に血流低下を認めるが、右半球の血流低下はみられなかった。

神経心理学的検査:〔知能〕WAIS-Rはtotal IQ 108, VIQ 105, PIQ 110。九九の暗唱はできず、下位項目では算数、組み合せがほかに比べ低得点だが、VIQとPIQとに差はなく、レーブン色彩マトリックス検査(RCPM)は33/37と良好であった。

〔記憶〕ウェクスラー記憶検査(WMS-R)は記憶指数113、言語性記憶指数118、視覚性記憶指数96であり、明らかな記憶障害はみられなかった。

〔前頭葉機能〕仮名ひろい5個、Wisconsin Card Sorting Test (WCST) Keio versionはカテゴリー達

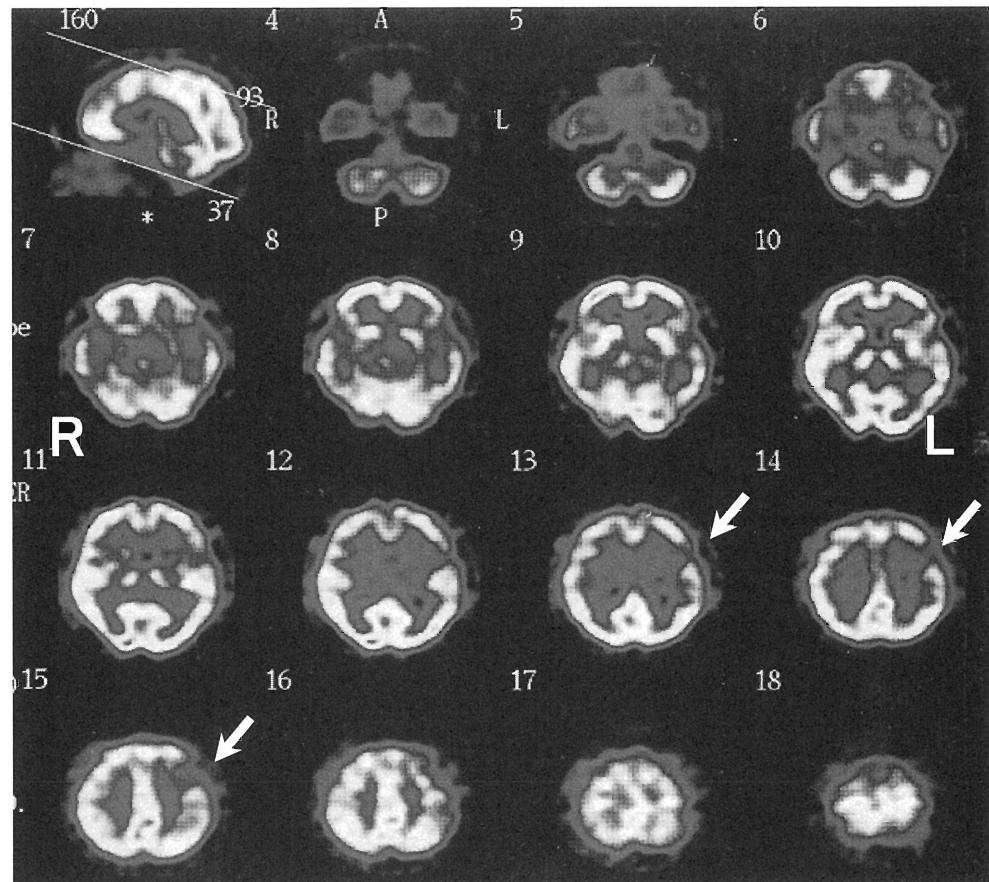


Fig. 2 SPECT axial image

Arrows present the decrease part of cerebral blood flow, the lesion in the left dorsolateral frontal lobe.

成数1, 語想起は1分間に動物12個、「か」のつくものの2個と、軽度～中等度の障害がみられた。

〔言語〕第16病日に施行したthe western aphasia battery(WAB)をTable 1に示す。発話は非流暢で、文節ごとに区切る傾向があり、単語で答えたり、助詞を言うまでに時間がかかったりしていた。物品呼称では音韻性錯語、語性錯語ともに認めなかった。書字では、漢字に比べ仮名で時間がかかり、錯書がみられたが失点は少なく、電文体は呈さなかった。そのほかは保たれ、復唱も良好であり、超皮質性運動失語と判断した。第16～30病日に施行した小学2年生まで学ぶ100字の漢字の読み書き試験では仮名で錯書（書き取り・態変換とも100問中3問）がみられたが、明らかな漢字と仮名の差は認めなかつた。Token Testでは58/62と、聴覚理解は比較的良好であった。

助詞を補う形で文法の検査を行った。発病直後から誤答が目立ち、正解に至る問題でも時間がかかった。軽度の保続もみられた。第8病日に施行した複

数の助詞の中から適当な助詞をカッコ内に当てはめる助詞選択問題を示す。「袋(は)缶詰(を)入れる」、「水道(は)栓(は)ひねる」等、適切な助詞が選択されなかった。正答しても「これでいいのか？」と訪ね、その選択に自信がなかった。態変換も同様に時間がかかり、かつ誤答した。第16病日の、同じ内容になるようにカッコ内に助詞を記入する態変換課題では、「犬は太郎を追いかけた→太郎(を)犬(に)追いかけられた」、「弟は犬に餌をやった→犬(に)弟(が)餌をもらった」等、動作の主体が入れ替わるもの、単文としても適切でない助詞を選択するもの等、助詞の理解ができていないと考えられた。

考 察

本例は半球側性化異常がないと考えられる右手利きで、左前頭葉背外側面に脳梗塞を生じ、超皮質性運動失語となった症例である。当初より電文体発話を呈し、dysprosodyもみられた。自発話では、「助詞が思い浮かばなくて会話に時間がかかる」という反省がみられた。書字では当初仮名に強い錯書を示し

Table 1 The Western aphasia battery-Japanese version examination profile

I	Spontaneous speech	14	A	Information content	9/10
			B	Fluency	5/10
II	Comprehension	9.3	A	Yes/No questions	51/60
			B	Auditory word recognition	60/60
			C	Sequential commands	75/80
III	Repetition	10			100/100
IV	Naming	10	A	Object naming	60/60
			B	Verbal recall	20/20
			C	Sentence completion	10/10
			D	Answer at conversation	10/10
V	Reading	9.8	A	Comprehension of sentences	40/40
			B	Reading commands	20/20
			C	Kanji to object matching	3/3
			D	Kana to object matching	3/3
			E	Kanji to picture matching	3/3
			F	Kana to picture matching	3/3
			G	Picture to kanji matching	3/3
			H	Picture to kana matching	3/3
			I	Matching between word and kana	2/2
			J	Matching between word and kanji	2/2
			K	Discrimination of kana characters	6/6
			L	Recognition of orally spelled kanji	5/6
			M	Oral spelling of kanji characters	5/6
VI	Writing	9.5	A	Writing as instructed	6/6
			B	Representation by writing	30/32
			C	Sentence writing to dictation	9/10
			D	Kanji writing from dictation	5/6
			E	Kana writing from dictation	5/6
			F	Kana writing according to the Japanese syllabary	12.5/12.5
			G	Number writing	10/10
			H	Kana character writing from dictation	2.5/2.5
VII	Praxis	9.9	I	Number writing from dictation	5/5
			J	Copying of sentences	10/10
VIII	Construction	9.5	K		59/60
			L	Drawing	29/30
			M	Block composition	9/9
			N	Calculation	24/24
			O	Raven's Coloured Progressive Matrices	33/37

aphasia quotient (AQ)=86.6

aphasia quotient (CQ)=91.3

たが、発症後数日で軽快した。助詞を補う課題では、時間がかかり、かつ不適切な助詞を選び、態変換でも、意味を同じにするように適切な助詞を選ぶことができなかった。本症例の病巣は BA 6, 9, 44 にほぼ限局しており、SPECT でも梗塞部位以外に右半球も含め明らかな血流低下は認められていない。

1. 半球側性化異常と文法障害

電文体発話では、内容語は保たれるが、文法的な機能語が顕著に減少するという際立った乖離が特徴である。電文体発話は失文法の最も際立った形であるが、日本語は、膠着語という言語的特徴を有する

ため、典型的な電文体発話や文法障害はまれであり¹⁾²⁾、本邦での電文体発話を主徴とする失文法症例の報告も少ない。また、電文体発話に代表される失文法は、これまで言語機能の半球側性化の異常との関連が指摘されてきた^{2)5)~7)}。

本例は右手利きで、左前頭葉背外側面の脳梗塞により電文体発話を生じたが、左手利きの矯正歴はなく、近親者もすべて右手利きであり、言語機能の半球側性化の異常はないと考えられる症例である。

交叉性失語の検討から、Brown ら⁵⁾は、右手利き交叉性失語の主症状を、発語の減少、ジャーゴンがな

いこと、失文法などの点とし、交叉性失語を示すものの、言語機能の大脳における半球側性化の未発達を推論している。しかし近年、左中前頭回～下前頭回損傷例での文法障害が報告され^{18)～10)}、交叉性失語の失文法との異同が問題となっている。

Sasanuma ら¹¹⁾は、右手利き右半球損傷による交叉性失語患者の症状分析から、文法要素の知識自体に欠損はなくその運用面に問題があるとした。さらに脱落や誤用を起こしやすい要素の考察から、左半球損傷による失文法と違い交叉性失文法は全体像の把握が困難となることを報告している。これは全体像の把握を特徴とする右半球機能の障害と関連が深いと考えられる。また、これまでの報告例では、右中大脳動脈領域全域³⁾、右前頭葉を中心とし側頭-頭頂葉を含む広範な領域¹²⁾、右内包後脚からレンズ核、放線冠にかけて広範な皮質下病巣⁴⁾⁷⁾など広範な病巣が多く、remote effect により左半球機能低下も臨床症状に関与する可能性がある。注意力障害など脳機能の全般的な低下も関連すると考えられ、純粹に右半球の文法障害を観察しているとは言い難い。

近年の健常成人を対象とした脳機能画像研究では、左Boca野とその周辺領域が文法処理を行う可能性が報告されている。中川ら¹³⁾は光トポグラフィー計測装置を用いて助詞判断課題を行い、左Boca野とその周辺領域に血流増加がみられたことから、この部位に助詞判断を行う文法処理機能が局在するとした。Inui ら¹⁴⁾はfunctional MRI(fMRI)を用いた研究で、埋め込み文の構文解析にかかわる部位は左Boca野(BA 44・45)であったと報告している。SantiとGrodzinsky¹⁵⁾はfMRIを用いて関係代名詞節をもつ文章理解を検討し、Broca野が統語理解に関与すること、Broca野内でも機能がわかれており、BA 45は関係代名詞節に修飾される名詞が、関係代名詞節内の文章でどの位置から移動してきたかの判断に、BA 44ではこれに加え関係代名詞節の埋め込まれる位置(中央埋め込み文、右埋め込み文)の判断も行っているとした。Sakai¹⁶⁾は、これまでの脳機能画像研究の結果から、左下前頭回と外側前運動野にあたるBA 44, 45, 6, 8, 9をgrammar centerと呼ぶことを提唱している。

左中前頭回～下前頭回損傷でみられる文法障害と交叉性失語にみられる文法障害の異同については今後更なる検討が必要であるが、左中前頭回～下前頭回損傷では文法機能そのものの障害で文法障害が生じ、交叉性失語では正確に文法を運用する注意機構

の障害で文法障害が生じると考えられる。

2. 電文体発話の病巣

近年、病変がBroca野に限局した場合にBroca失語は生じず¹⁷⁾流暢性失語が生じることが報告され¹⁸⁾、Broca失語の特徴である非流暢性発話の原因となるdysprosodyや構音障害は、BA 44・45のみの障害では生じない。foreign accent syndromeの病巣は報告により一定していないが、BA 6との関連も指摘されており¹⁹⁾、本例のdysprosodyはBA 6に、また電文体発話はBA 9, 44に由来すると考えられる。

斎田ら⁴⁾は、左手利き素因のない右手利き症例で、左中前頭回後部で中心前回に及んでいない病巣を持つBoca失語の回復期に電文体発話が明確となった症例を報告している。この症例もdysprosodyが顕著で、課題面では文法障害はさほど強くなかったが、自発話で電文体発話が明らかで、文の構成の過程で助詞の使用に関する機能不全が示唆されている。

超皮質性運動失語の分類については確立していないが、榎戸は超皮質性運動失語を3型に分類した⁸⁾。上前頭回に病巣を有するF1、中前頭回後部に主病変を有するF2、左下前頭回を病変の一部として含むF3である。この分類によれば、本症例はBA 44を含み、F3に分類される。F3の臨床像は、dysprosodyは症例により認められるが必ずしもあるわけではなく、復唱は通常保たれるが早口言葉は困難で、軽度の音韻論的レベルの障害がみられる。書字では仮名の困難さがより目立つ傾向がある。文法問題では助詞選択、動詞活用、構文変換などほぼ全課題で文法障害がみられ、中等度～高度の統語論的側面の障害がみられる。本例の臨床像も同様に、foreign accent syndromeをきたすdysprosodyがあるが構音のゆがみはなく、復唱は保たれていた。書字では漢字に比較し仮名が困難で、自発話は電文体発話であり助詞選択課題でも障害がみられた。

本例の文法障害は、自発話で電文体発話を呈すこと、助詞選択課題でも適切な助詞選択に時間がかかりかつ誤答することから、適切な助詞を選択できない助詞選択障害が主体といえる。つまり、文法的形態素である助詞の障害¹⁰⁾があり、文節を構成する文法の形態論での障害、文法的マーカーの省略という、機能語である助詞の脱落や誤用のために文產生障害が生じている。これは斎田らの報告例⁴⁾と同様と思われる。本症例はToken Testで聴覚理解は良好であることから、文理解はおおむね保たれている。近年

の脳機能画像研究では文法障害として主に統語理解に着目している^{13)~16)}が、本例のように文產生と文理解の障害が乖離する症例が存在することから、文法障害は文產生と文理解に分けてとらえるべきであり、今後統語理解という受動的側面だけではなく、助詞選択、文章作成などの能動的側面の文法機能の評価が必要である。また、本例は BA 44, 9 の障害で助詞選択障害により文產生が障害されていると考えられ、この部位に文節を構成するために適切な助詞を選択する機能が存在することが示唆された。

結論

1. 左前頭葉背外側面 (BA 6, 9, 44) の脳梗塞により電文体発話を呈した超皮質性運動失語を経験した。
2. 半球側性化異常がないと考えられる右手利き症例で、文法障害は統語理解が良好なのに比し文產生が低下していた。
3. 本例の文法障害の主体は、構文において適切な助詞が選択できない助詞選択障害が主体であり、BA 44, 9 にこの機能の存在が示唆された。
4. 文法障害は統語理解という理解面に加え、助詞選択、文章作成などの表出面の評価も必要である。

本研究の主旨は第 25 回日本失語症学会(2002 年、現日本高次脳機能障害学会)において発表した。

開示すべき利益相反はない。

文献

- 1) 榎戸秀昭：失語と文法障害。臨床科学 **28**: 707-712, 1992
- 2) 竹内愛子、河内十郎、河村 満ほか：右利き交叉性失語における失文法の検討。失語症研究 **6**: 74-85, 1986
- 3) 長谷川啓子、河村 満、平山恵造：右大脳半球梗塞病変による失文法。失語症研究 **12**: 232-238, 1992
- 4) 斎田比左子、藤原百合、山本 徹ほか：電文体発話を呈した右利き左中前頭回後部の小出血の 1 例。失

- 語症研究 **14**: 230-239, 1994
- 5) Brown JW, Hécaen H: Lateralization and language representation. Neurology **26**: 183-189, 1976
- 6) 田中春美、立花久大、中野恭一ほか：左利き右半球損傷で典型的な失文法を呈した 1 例。神經心理学 **4**: 67-73, 1988
- 7) 遠藤美岐、三谷洋子、森 悅朗ほか：失文法を主症状とする右利き交叉性失語の 1 例。失語症研究 **5**: 887-892, 1985
- 8) 榎戸秀昭：超皮質性運動失語。精神医学 **27**: 671-677, 1985
- 9) 大槻美佳、相馬芳明、小山 晃ほか：左前頭葉病変による超皮質性感覚失語の 1 例。脳と神経 **46**: 866-871, 1994
- 10) 藤田郁代：統語障害—日本語の失文法—。高次脳機能研究 **33**: 1-11, 2013
- 11) Sasanuma S, Kamio A, Kubota M: Crossed agrammatism in Japanese: a case study. In *Agrammatic Aphasia: A Cross-Language Narrative Sourcebook*, vol 2. (Menn L, Obler LK eds), pp1309-1353, John Benjamins Publishing, Amsterdam (1990)
- 12) 毛束真知子、河村 満、矢野雄三：混合性超皮質性失語を呈した交叉性失語。神經心理学 **9**: 216-220, 1993
- 13) 中川佳子、望月登志子、田中 泉ほか：脳血流量変化からみた日本語文法処理における大脳皮質の機能局在性の検討。Health Behavior Sci **2**: 35-41, 2003
- 14) Inui T, Otsu Y, Tanaka S et al: A functional MRI analysis of comprehension processes of Japanese sentences. Neuroreport **9**: 3325-3328, 1998
- 15) Santi A, Grodzinsky Y: fMRI adaptation dissociates syntactic complexity dimensions. Neuroimage **51**: 1285-1293, 2010
- 16) Sakai K: Language acquisition and brain development. Science **310**: 815-819, 2005
- 17) Mohr JP: Broca's area and Broca's aphasia. In *Studies in Neurolinguistics* (Whitaker H, Whitaker HA eds), pp201, Academic Press, New York (1979)
- 18) 相馬芳明、大槻美佳、吉村菜穂子ほか：Broca 領域損傷による流暢性失語。神經内科 **41**: 385-391, 1994
- 19) Graff-Radford NR, Cooper WE, Colsher PL et al: An unlearned foreign "accent" in a patient with aphasia. Brain Lang **28**: 86-94, 1986