

陰部むずむず感で発症したパーキンソン病の1例

澤村 正典¹⁾ 當間圭一郎¹⁾ 垂髪 祐樹¹⁾
 関谷 智子¹⁾ 西中 和人¹⁾ 宇高不可思^{1)*}

要旨：症例は62歳女性。2010年に陰部むずむず感が生じた。2013年より歩行障害・易転倒性が進行し、パーキンソン病 (Parkinson's disease; PD) と診断した。クロナゼパム、プラミベキソールにより陰部むずむず感は改善した。Persistent genital arousal disorder (PGAD) は性的欲求とは無関係に陰部感覚の高ぶりや苦痛を生じる病態であり、レストレスレッグ症候群 (restless legs syndrome; RLS) を高頻度に合併し、クロナゼパムが有効である。そのためRLSと共通の病態が想定され、restless genital syndrome (RGS) という概念が提唱されている。本例はPGAD/RGSで発症したPDのはじめての報告である。

(臨床神経 2015;55:266-268)

Key words：レストレスレッグ症候群，パーキンソン病，restless genital syndrome，persistent genital arousal disorder，プラミベキソール

はじめに

レストレスレッグ症候群 (restless legs syndrome; RLS) はパーキンソン病にしばしば合併する¹⁾。RLSは下肢だけでなく上肢や顔に症状が出現する例や腹部にRLS類似の症状をみとめた例も報告されている²⁾³⁾。以前より陰部に強い異常感覚や苦痛が出現するpersistent genital arousal disorder (PGAD) という病態が報告されているが、RLSとの関連が示唆されており、restless genital syndrome (RGS) という呼称も提唱されている。今回、われわれは陰部むずむず感という特異的な症状が先行したパーキンソン病の1例を経験し、RGS/PGADに合致するものと考え報告する。

症 例

症例：62歳女性

主訴：陰部むずむず感

既往歴・家族歴：L4/5椎間板ヘルニア、家族内に神経疾患の既往はない。

現病歴：2010年に胃腸炎で補液治療を受けた際に陰部に強いむずむず感が出現したが、点滴が終了し歩行を始めると症状が消失した。その後は症状なく経過していたが、2012年5月頃より再度陰部の強いむずむず感が出現するようになった。症状は安静時や夜間に強く、陰部に突き刺すような痛みに似た感覚やむずむず感が数時間も続くこともあった。強い不快感のため不眠をともなったが、歩行により症状はある程

度軽減した。また、この頃より歩行困難感を自覚するようになった。陰部むずむず感の症状のため、精神科など複数の医療機関を受診し、心因性と診断されクロナゼパム、オランザピンが処方され、ある程度改善した。2013年頃より歩行障害が進行したため、2014年1月に当科を受診した。外来診察でパーキンソニズムの存在をうたがいが、パーキンソニズムを増悪させる可能性を考慮し、オランザピンをクエチアピンへと変更の上で精査入院とした。

入院時現症：身長147cm、体重44.5kg。一般身体所見は特記事項なし。神経学的所見は脳神経系に明らかな異常はみとめず、眼球運動制限もみとめなかった。軽度の仮面様顔貌をみとめた。四肢筋力低下はみとめなかった。左上肢に軽度の筋強剛をみとめた。歩行はややすり足であり、左上肢の振りが少なかった。振戦はみとめなかった。軽度の寡動、姿勢反射障害をみとめた。小脳失調はみとめなかった。陰部やその周囲をふくめて感覚障害はみとめなかった。腱反射は正常であり、病的反射もみとめなかった。自律神経症状は便秘をみとめた。

検査所見：一般採血検査では明らかな異常をみとめなかった。血清鉄やフェリチンも正常であった。頭部・脊椎MRIでは異常をみとめなかった。¹²³I-MIBG心筋シンチグラフィでは心縦隔比が早期像1.50、後期像1.33と集積の低下をみとめた⁴⁾(Fig. 1)。神経伝導検査では運動神経、感覚神経、体性感覚誘発電位に異常をみとめなかった。

入院後経過：仮面様顔貌、左右差のあるパーキンソニズムをみとめ、¹²³I-MIBG心筋シンチグラフィで集積低下をみとめ

*Corresponding author: 住友病院神経内科 [〒530-0005 大阪府大阪市北区中之島5-3-20]

¹⁾ 住友病院神経内科

(受付日：2014年6月26日)

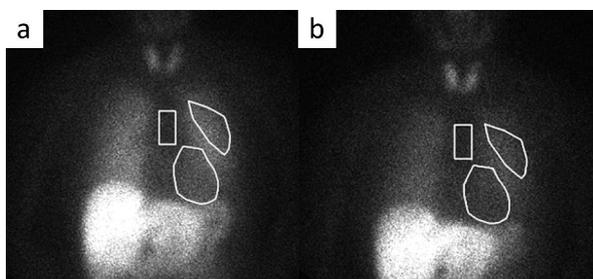


Fig. 1 ^{123}I -MIBG scintigraphy.

A low early (a) and delayed (b) MIBG heart/mediastinum ratio is observed in the patient, indicating cardiac denervation.

ることから Hoehn & Yahr stage I のパーキンソン病と診断した⁴⁾。プラミベキソール 0.375 mg/日より開始し、0.75 mg/日に増量した。歩行障害の軽度改善とともに陰部むずむず感の出現頻度が低下した。クエチアピンを中止したが、同症状の増悪はみとめなかった。International Restless Legs Syndrome Rating Scale (IRLS) の下肢むずむず感を陰部むずむず感に読み替えて評価をおこなった⁵⁾。クロナゼパム、オランザピン開始前は IRLS で 34 点であった。クロナゼパム、オランザピン開始後、症状は改善傾向であった。外来でオランザピンをクエチアピンに変更したが陰部むずむず感や歩行障害に大きな変化はなく、入院時点で IRLS は 21 点であった。入院後、プラミベキソール開始・クエチアピン中止後は 10 点にまで改善した。オランザピン、クエチアピン中止後に症状の増悪をみとめなかったことから、クロナゼパムとプラミベキソールが有効であったと考えられた。効果を確認するためクロナゼパムを一旦中止することも考慮したが、患者の同意をえることができなかった。プラミベキソール 0.75 mg で陰部むずむず感が改善したため 2014 年 3 月に退院とした。歩行障害に対しては引き続き外来にて抗パーキンソン病薬の調整をおこなった。

考 察

RLS は必ずしも下肢に限定した症状ではなく、久米らの報告では RLS 患者の 3% で上肢や顔面にも症状をみとめた²⁾。また、腹部むずむず感を特徴とした RLS の亜型と考えられた症例報告もある³⁾。本症例では陰部むずむず感という特異な症状であったが、安静時に症状が増悪する点、歩行により症状が軽減する点、夕から夜間に症状が増悪する点は RLS の診断基準を満たし⁶⁾、RLS との関連が示唆されているパーキンソン病を合併した点から本症例の陰部むずむず感は RLS に類似した病態と考えた¹⁾。また本症例の陰部むずむず感は RLS の治療薬であるクロナゼパム、プラミベキソールで症状の改善をみとめたことも¹⁾⁷⁾、RLS 類似の病態として矛盾しな

いものであった。以前より本症例と類似した PGAD という性的欲求とは無関係に持続する陰部感覚の高ぶりや苦痛を生じる病態の報告がある^{8)~10)}。PGAD は RLS のように症状を緩和するために陰部を動かしたい、擦過したい、という欲求を生じること、67% の症例で RLS を合併すること、クロナゼパムが有効であることから RLS と共通する病態が想定され、RGS という名称も提唱されている¹⁰⁾。本症例も RGS/PGAD に合致する症状と考える。本症例ではパーキンソン病発症に陰部むずむず感が先行しており、パーキンソン病と RLS の関連性を考えると¹⁾、パーキンソン病と RGS/PGAD、RLS に共通の病態が示唆される。パーキンソン病に先行する RGS/PGAD は既報告がなくまれと考えられるが、症状の特異性から患者からの訴えが少ない可能性があり注意を要する。

※本論文に関連し、開示すべき COI 状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

文 献

- 1) Garcia-Borreguero D, Odin P, Serrano C. Restless legs syndrome and PD: a review of the evidence for a possible association. *Neurology* 2003;61:S49-55.
- 2) 久米明人, 久米英明. Restless legs syndrome の診断基準と日本人の臨床特徴. *神経内科* 2012;76:24-32.
- 3) Pérez-Díaz H, Iranzo A, Rye DB, et al. Restless abdomen: a phenotypic variant of restless legs syndrome. *Neurology* 2011;77:1283-1286.
- 4) 織茂智之. パーキンソン病およびレビー小体型認知症の早期診断法の確立とその病態機序に関する研究. *臨床神経* 2008;48:11-24.
- 5) Walters AS, LeBrocq C, Dhar A, et al. Validation of the International Restless Legs Syndrome Study Group rating scale for restless legs syndrome. *Sleep Med* 2003;4:121-132.
- 6) Allen RP, Picchietti D, Hening WA, et al. Restless legs syndrome: diagnostic criteria, special considerations, and epidemiology. A report from the restless legs syndrome diagnosis and epidemiology workshop at the National Institutes of Health. *Sleep Med* 2003;4:101-119.
- 7) 日本神経治療学会治療指針作成委員会編. 標準的神経治療: Restless legs 症候群. *神経治療* 2012;1:73-109.
- 8) Leiblum SR, Nathan SG. Persistent sexual arousal syndrome: A newly discovered pattern of female sexuality. *J Sex Marital Ther* 2001;27:365-380.
- 9) Waldinger MD, van Gils AP, Ottervanger HP, et al. Persistent genital arousal disorder in 18 Dutch women: Part I. MRI, EEG, and transvaginal ultrasonography investigations. *J Sex Med* 2009;6:474-481.
- 10) Waldinger MD, Schweitzer DH. Persistent genital arousal disorder in 18 Dutch women: Part II. A syndrome clustered with restless legs and overactive bladder. *J Sex Med* 2009;6:482-497.

Abstract**A case of Parkinson's disease following restless genital sensation**

Masanori Sawamura, M.D.¹⁾, Keiichiro Toma, M.D., Ph.D.¹⁾, Yuki Unai, M.D.¹⁾,
Tomoko Sekiya, M.D.¹⁾, Kazuhito Nishinaka, M.D.¹⁾ and Fukashi Udaka, M.D., Ph.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Sumitomo Hospital

A 62-year-old woman experienced uncomfortable genital sensation in 2010. Her uncomfortable sensation was exacerbated during rest at night and improved by walking. She exhibited short-stepped gait with postural disturbance and was diagnosed as suffering from Parkinson's disease (PD) in 2013. Administration of clonazepam and pramipexisole improved her uncomfortable genital sensation. In persistent genital arousal disorder (PGAD)/restless genital syndrome (RGS), abnormal genital sensation occurred without sexual desire, which was relieved by clonazepam administration. PGAD/RGS often coexists with restless legs syndrome (RLS). PGAD/RGS and RLS share common characteristics. This is the first case report of PD following PGAD/RGS, suggesting similar underlying mechanisms between PGAD/RGS and RLS associated with PD.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2015;55:266-268)

Key words: restless legs syndrome, Parkinson's disease, restless genital syndrome, persistent genital arousal disorder, pramipexisole
