

■原著

母音/i/, /e/の産生困難が持続した左中心回の 皮質・皮質下梗塞による失構音の1例

柴 切 圭 子* 米 田 行 宏** 山 鳥 重***

要旨：左中心回の皮質・皮質下領域の脳梗塞により失構音を生じ、その回復過程で母音/i/, /e/の産生が子音獲得後にも困難だった症例を報告する。症例は72歳の右利き男性。神経症状では、右側の軽度の球麻痺と上肢に強い右片麻痺、右側感覚障害を呈した。言語機能では、急性期に発語はなく、口型模倣も困難、聴覚理解は良好で筆談が可能。SLTA（標準失語症検査）の呼称課題が筆談で全問正答し失構音に近い症状だったが、文レベルの書字で助詞などの仮名の誤りを若干認めた。構音機能は言語訓練によって改善し、子音は半母音/j/を除いてすべて産生可能になった。母音は/a/, /u/, /o/が産生可能になったが、/i/, /e/は発症2年後でも産生困難が持続していた。しかし、産生可能な音節を組み合わせると2語文の表出が可能になった。情動的場面では、ごくまれに笑い声や掛け声で母音/i/, /e/を含む音節が産生できることがあった。口部顔面失行も持続していた。脳MRIでは、左中心前回の最下部を除く皮質領域、中心前・後回の皮質下に限局した梗塞巣を認め、放線冠にも及んでいた。本例の言語症状は、従来の失構音症例でみられる非一貫性の構音の誤りに加えて、一貫した構音不可能な音節を持つ点が特徴的だった。皮質性の失構音に加えて、運動障害性の構音障害の関与、球麻痺の意図性・自動性の乖離として知られる前弁蓋部症候群（anterior operculum syndrome）の関与が考えられた。（高次脳機能研究 23(4)：272～280, 2003）

Key Words : 失語症, 脳梗塞, 中心回, 失構音, 運動障害性構音障害

aphasia, ischemic stroke, central gyrus, anarthria, dysarthria

はじめに

発語面のみに障害を示し、言語理解や文字言語が保たれた状態は、「失構音 (anarthria)」（Marie 1906）、「皮質性構音障害 (cortical dysarthria)」（Whitty 1964）、「発話失行 (apraxia of speech)」（Darley ら 1975）、「音声学的解体症候群」（Alajouanine 1956）など、さまざまな用語で表現されており、その純粋型が存在しうるか否かを含めてこれまでに多くの議論がある（山鳥 1985）。しかし、依然として意見の統一がなく、「古くて新しい問題」（伊藤 1999）とも言われている。ここでは、便宜上、発語面のみに

に障害を示す状態を、「失構音 (anarthria)」と称することにする。失構音は、症状分析の方法や対象患者の選択の違いなどによる混乱があるものの（吉野 1994）、機能予後の認識ではほぼ一致しており、一貫性のない構音の誤りとプロソディーの障害は残るが、文法的には完全な文を話すようになるといわれている（Darley ら 1975）。

今回われわれは、左中心回の皮質・皮質下に限局した脳梗塞により重度の失構音を呈し、その回復過程において母音の獲得が困難であった1例を経験した。本例の症状は特異的と思われたので、その責任病巣および発現機序について考察を加えて報告する。

*兵庫県立姫路循環器病センター リハビリテーション科神経心理室 〒670-0981 兵庫県姫路市西庄甲520

**兵庫県立姫路循環器病センター 神経内科

***神戸学院大学人文学部

受稿日 2003年4月28日

受理日 2003年9月29日

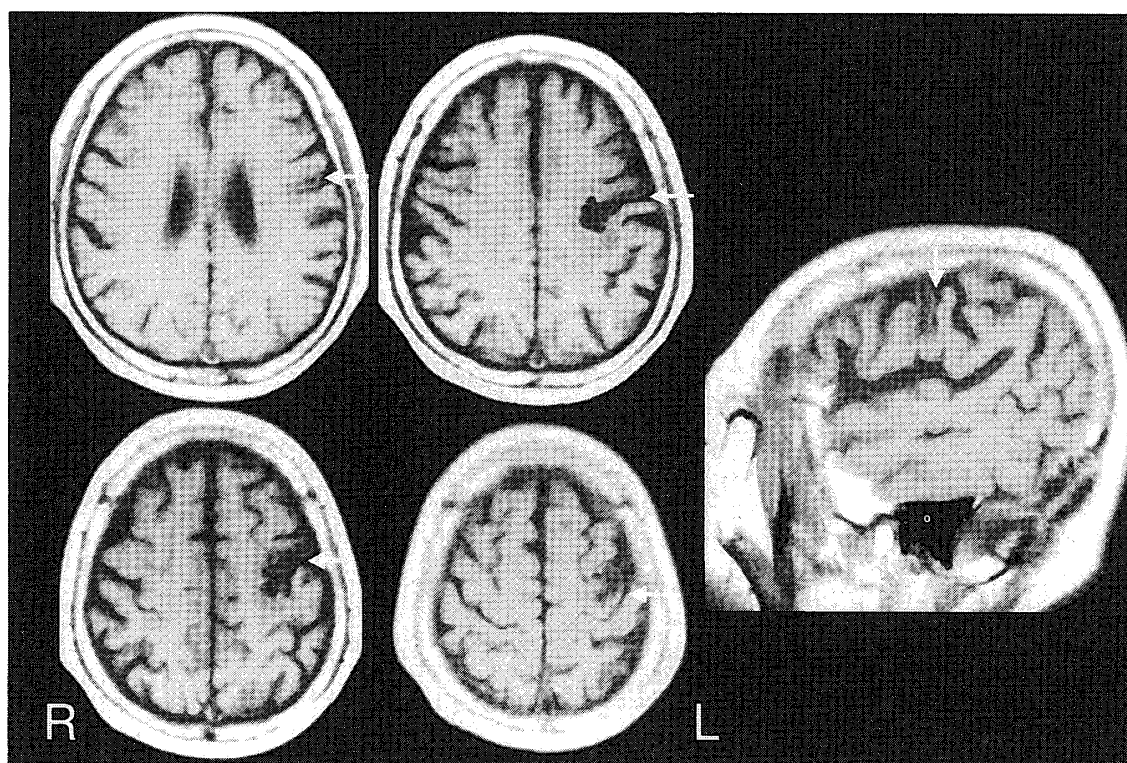


図1 MRI

I. 症 例

症例：72 歳，右利き男性，学歴は旧制中学校卒。元印鑑製造業。

既往歴：心筋梗塞（1996 年），糖尿病，高血圧。

現病歴：1998 年 11 月 30 日午後 11 時ごろ，自宅のトイレから出てきた時に歩行障害があり，発語もまったくみられなかった。翌 12 月 1 日午前 1 時 50 分に姫路循環器病センターを救急受診して，脳梗塞の疑いで入院した。

入院時神経学的所見：意識状態は傾眠傾向で呼びかけに開眼したが発語はまったくなかった。右片麻痺があり，右上肢筋力 0～2/5，下肢筋力は 3～4/5 だった。右側の感覚障害も認めた。右中枢性顔面麻痺，挺舌での軽度右方偏位を認めた。右中枢性顔面麻痺については，意図的動作と感情表出場面での差は認められなかった。

神経放射線学的所見：救急受診時（発症約 3 時間後）の脳 CT には低吸収域はなかったが，翌日の CT で左前頭葉の皮質・皮質下に限局性の低吸収域を認めた。発症 10 日後の脳 MRI（シーメン

ス社 1.0 T）では，左中心回の皮質から皮質下にかけて梗塞巣が認められた。脳 MR angiography で，左内頸動脈系には有意な狭窄や閉塞病変はなかったが，無症候性の右内頸動脈閉塞が認められた。心臓超音波検査では，陳旧性心筋梗塞による左室壁の運動低下を認めた。心原性脳塞栓症と臨床診断した。現在，抗凝固療法による治療を継続している。

発症 1 年後の脳 MRI（図 1，図 2）の T₁強調像（1.0 T）では，左中心前回の皮質領域と中心前・後回の皮質下領域に限局した低信号域を認めた。T₁強調矢状断像では，左中心前回の皮質領域の最下部領域は保たれていた。FLAIR（fluid-attenuated inversion recovery）画像では，T₁強調像で認められた病変に加えて放線冠領域にも高信号域は拡がっていた。また，右半球の皮質下領域にも散在性の高信号域が認められた。

神経心理学的所見：発症時の傾眠状態から改善した後も，無言状態が持続した。しかし，2 段階命令（例：閉眼と挙手）などの動作命令に従うことができ，首振りとうなずきで意思疎通は可能だった。発症 17 日後の言語評価では，意識レベ



図 2 MRI

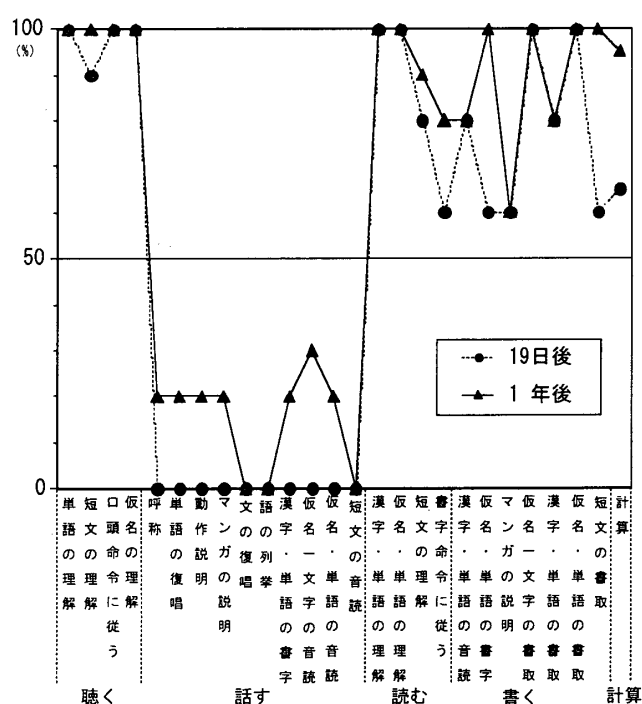


図3 標準失語症検査 (SLTA)

ルは良好だったが発語衝動はなく、促すと開口して、かすかに息もれのする音声を発した。系列語や歌の誘導にも反応せず、促しに対して顎を開閉させるだけだった。口型模倣は困難で、口部顔面

失行が認められた。発症 19 日後に施行した標準失語症検査（以下 SLTA）では、発語以外のモダリティーで好成績を示した（図 3）。書字については、文レベルで仮名の脱落や誤りが認められたが、呼称課題の筆談は全問正解した。本例は発症初期より筆談を多用して、周囲との意思疎通には大きな問題はなかった。発症 36 日後に SLTA 動作説明を書字で実施したところ、仮名の脱落があるものの 2 語文の表記が可能だった（図 4）。また、発症 37 日後に実施した WAIS-R（Wechsler Adult Intelligence Scale-Revised）では動作性 IQ は 68 だった。

II. 症狀分析

1. 構音機能

発症19日後から母音/a/、/u/が表出可能になったが、/o/は/u/に置換していた。母音/i/、/e/は顎の開閉のみで音声は出ず、口型模倣も困難だった。その後、/o/は表出可能になったが、/i/と/e/は産生困難な状態が続き、ST (speech therapist) が指や舌圧子で口型を援助して音声を表出させると/u/に近い歪んだ音になっ

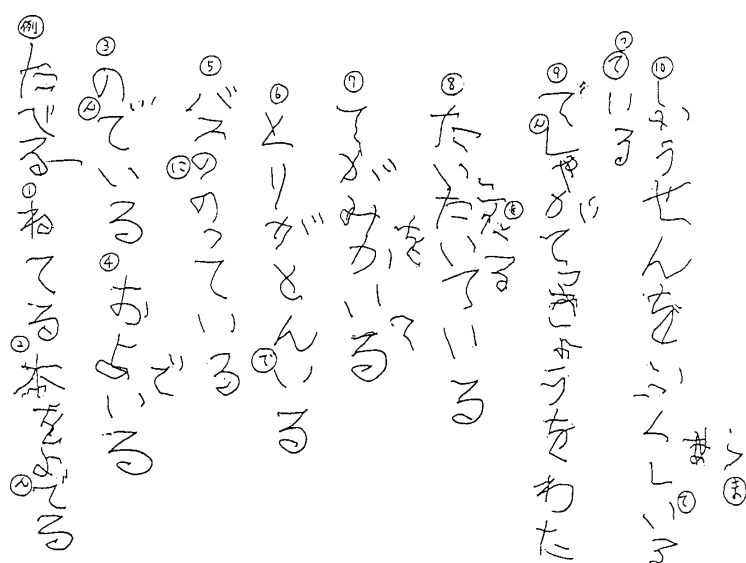


図4 SLTA 動作説明

左手書字での説明。○で囲んだ文字は著者による。

表1 構音不可能な音節

/い/行	/え/行	
/や/	/ゆ/	/よ/
/きや/	/きゆ/	/きよ/
/ぎや/	/ぎゆ/	/ぎよ/
/しゃ/	/しゆ/	/しよ/
/じゃ/	/じゆ/	/じよ/
/ちゃ/	/ちゆ/	/ちよ/
/にや/	/にゆ/	/によ/
/ひや/	/ひゆ/	/ひよ/
/ぴや/	/ぴゆ/	/ぴよ/
/びや/	/びゆ/	/びよ/
/みや/	/みゆ/	/みよ/
/りや/	/りゆ/	/りよ/

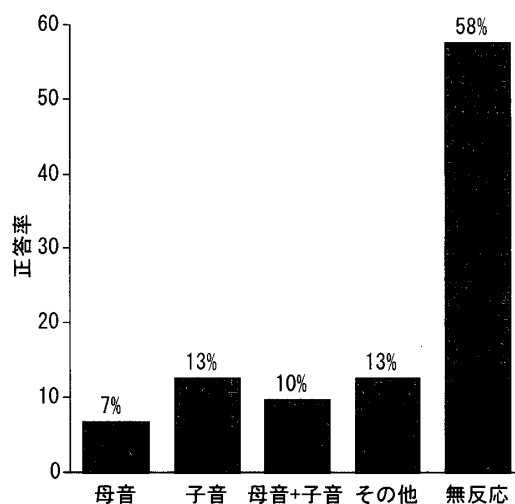


図5 単音節の復唱における誤り分析

た。子音は両唇音から獲得し、発症9ヵ月後には、半母音の/j/以外のすべての子音が産生可能になった。しかし母音/i/, /e/の産生困難は持続し、発症2年後では61音節が構音不可能のままだった(表1)。発症3年後の現在まで、ごくまれに/ja/に近い音声が出る程度で、大きな変化はなかった。

発症18ヵ月後に、単音節の復唱を用いて構音の誤りを分析した(図5)。単音節の誤りは、/i/, /e/を含む音節でほとんどが無反応になり、そのほかは構音可能な音節への一貫性のない置換や歪みになった。単語に関しては、構音不可能な

61音節を除外した音節を用いた3モーラの単語の復唱で誤りを分析した(図6)。本例は、音声を出さずに口型だけで慎重に探索を行うため誤り音の数はきわめて少なく、2回実施した検査の誤り数は全反応数104に対して19のみであった。誤り数が少ないため十分な分析は行えないが、モーラ数や誤り方、誤り位置に明らかに突出した誤り傾向はみられなかった。

発症2年後では構音可能な音節を組み合わせた2語文の音読が可能だったが、抑揚に欠け1音節ずつ区切って慎重に産生した。みずから話そうとすることはなく筆談を多用し、自発語の量は発症

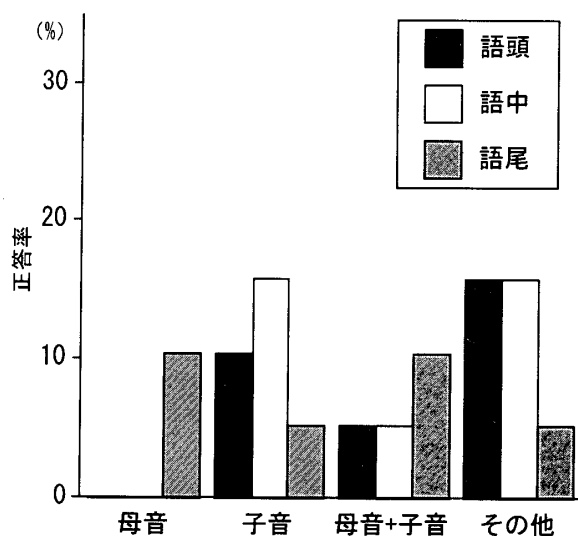


図6 3モーラ単語の復唱における誤り分析

時と変化がなかった。母音/i/, /e/が産生困難な状態も変化なく、無理に言わせようとするとう/u/や/k/に近い歪んだ音になった。自動言語も少なく、「よいしょ」、「やあ」などがこれまでにごくまれに聞かれた程度である。感情言語は、怒ると「こおお」、笑うと「いひひ、へへえ」と出る。発症1年後に実施したSLTAでは、発語面での改善がみられたが、正答した項目は母音/i/, /e/を含まない単語の音読や呼称に限られていた(図3)。

2. 口部顔面の随意運動

発症1.5ヵ月後、18ヵ月後に、挺舌や舌打ちなどの口部顔面の随意運動22項目について調べた(表2)。発症時には挺舌すら困難だった失行症状は徐々に改善したが、現在でも舌の動きを中心に錯行為が顕著である。とくに、舌に力を加えずリラックスさせた状態に保つことが困難で、下の歯の並びに沿って舌をのせるように指示すると舌尖が不随意に上下運動したり、舌が口腔内で丸まったりするなどの錯行為がみられた。錯行為に関しては、左右どちらかへの一貫した偏りなどは認められなかった。発声発語器官の麻痺に関しては、中等度の右中枢性顔面神経麻痺と挺舌時の舌の右方偏位がみられたが、舌の上下、左右運動はおおむね正常だった。

表2 口部顔面の随意運動

	45日後	1年6ヵ月後
開口	—	—
口を横に引く	+	+
口をとがらす	—	—
口唇を呼気で破裂	+	+
両頬を膨らませる	—	—
挺舌	+	—
上唇を舌でなめる	—	—
舌先を硬口蓋につける	+	+
舌打ち	+	+
息を吹く	+	—
咳払い	+	+
下唇を噛む	+	+
舌の左右運動	—	—
舌の出し入れ	—	—

+：症状あり —：症状なし

III. 考 察

1. 失構音と運動障害性構音障害

本例は、急性期には無言状態だったが、亜急性期から発語がみられるようになった。しかし発語量は少なく、構音時に顕著な探索を伴い、産生された構音が途切れがちで一貫性に乏しく、口部顔面失行を伴っていた。言語理解は、おおむね良好であり、筆談を用いてコミュニケーションが可能だったが、1年後のSLTAの成績においても理解や書字面に若干の低下が認められていた。したがって、本例の症状は、厳密にはBroca失語(Moriら1989)に分類すべきだが、言語症状の中心はいわゆる失構音(山鳥1985)に近い状態と考えられた。

本例でもっとも特徴的だった言語症状は、失構音の回復過程において、母音/a/, /u/, /o/とともに子音が比較的容易に改善したにもかかわらず、発症後2年以上にわたり、母音/i/, /e/の産生が単語および文章レベルにおいても一貫して障害されていたことである。しかし、情動的な場面では、ごくまれにはあるが母音/i/, /e/が産生されることがあった。

一般的に、失構音の特徴として発話における構音の非一貫性があげられる。一方、一貫性のある構音の障害は、多くの場合には運動障害性構音障

表 3 一貫性のある構音障害を持つ失構音の報告例

著者	病因	病巣側	病巣	顔面 麻痺	口部 失行	失語	構音不能な音節
本症例	梗塞	左	中心前回 皮質・皮質下	+	+	仮名	/i/, /e/
中島 (1997)	梗塞	左	中心溝 近傍	-	+	仮名	/e/, 子音大半
芦名ら (1998)	梗塞	左	中心前回	+	+	+	歯茎摩擦音 声門摩擦音
橋爪ら (1996)	梗塞	右 左	中心前・後回 橋・被殻	+	+	書字 計算	/i/, 子音大半
越部ら (1991)	梗塞	左	F 2～中心前回 下部	+	+	仮名	構音不明瞭で 実用性なし
進藤ら (1991)	梗塞	左	F 3～中心前回 皮質下	-	-	仮名 改善	/a/以外, 摩擦・弾・ 拗音不得手
+		+：症状あり		-：症状なし			
		F 2：中前頭回		F 3：下前頭回			

害に分類できる。本例では、非一貫性の構音障害が顕著で口部顔面失行も伴っていたことから、失構音が言語症状の主体であったと考えられる。しかし、母音/i/, /e/の産生障害が持続していたことを“一貫性の障害”としてとらえるなら、運動障害性構音障害の関与についても検討する必要がある。実際本例には下部脳神経麻痺と上肢に強い運動障害があり、母音/i/, /e/の産生障害がある特定の構音器官の運動低下によりもたらされたと考えられることもできる。しかし、さまざまな口腔器官を用いて狭めを作る子音とは異なり、母音は舌や下顎、口唇の位置で産生される、きわめて基本的な構音動作とされている (Bernthal ら 1998)。したがって、本例のように子音産生には問題がない状態に改善した後に、母音のみに影響を与えるような構音器官の障害を想定するのは、臨床的にかなり無理があるように思われる。本例の一貫した母音の産生障害に対する運動障害性構音障害の関与の可能性は否定できないが、そのみの影響とは考えにくく、失構音と合併することにより特異的な症状として出現したのではないかと考えた。

2. 一貫性の構音障害を持つ失構音の報告例

これまでに、本例のように失構音に分類される言語症状を呈したにもかかわらず、一貫した構音

障害を伴っていた報告例が散見される (表 3)。これまでの報告例と本例との相違点として以下の 2 点があげられる。まず、本例以外では限られた音韻が表出困難というよりは、むしろ表出可能な構音が限定されており、本例よりも全体的に表出レベルが重度である。第 2 に、本例以外では構音可能な音韻に母音が多く含まれ、子音の産生が困難な例が多い (中嶋 1997, 芦名ら 1998, 橋爪ら 1996, 越部ら 1991, 進藤ら 1991)。これらの相違点が単に重症度による差であるのか、質的な差であるのか不明であるが、予後良好とされる失構音の特徴からは逸脱するグループであることは間違いないと考えられる。

3. 病巣との関連

本例の病変は、皮質領域では左中心前回に局限していたが、その最下部領域は保たれていた。皮質下領域では中心前回から中心後回に拡がっており、一部は放線冠にも及んでいた。従来から、失構音の責任病巣として重視されているのは優位半球の中心前回、とくにその下部領域とされている。本例の病変は、左中心前回の最下部領域の皮質は保たれていたが、皮質下病変では中心後回にまで拡がっていた。したがって、本例の失構音にはこの病巣が関与していると考えられる。

一方、本例に特異的だった母音/i/および/e/の

一貫性の産生障害の責任病巣について考察する。一般的に、一貫性を示す構音障害は、構音器官を支配する運動神経の麻痺によるものとされており、その責任病巣として中心前回の下部に位置する上位運動ニューロン～皮質下～放線冠および内包後脚～橋～延髄に存在する下部脳神経核、さらに脳神経核からの末梢の脳神経のいずれもが考えられる。これまでに、中心前回の一次運動野に存在する上位運動ニューロンから皮質下の線維の選択的障害により構音障害を生じた報告例がある (Ichikawa ら 1991, Kim 1994)。本例では、右側の下部脳神経麻痺を伴っており、また四肢では上肢に強い運動麻痺が認められていたことや、中心前回の下部から皮質下さらに放線冠に及ぶ病変を伴っていたことから、本例の一貫した構音障害には運動障害性の構音障害も関与していた可能性がある。つまり、非一貫性の失構音と中心前回病巣、一貫性の構音障害と中心前回の皮質から皮質下および放線冠の病巣、この両者がある一定の影響を示しながら組み合わせられた場合に、本例のような特異的な失構音症状が生じるのかもしれない。

4. 口部顔面の随意運動との関連

口部顔面失行が失構音に付随して生じる可能性は高く、両者の関連性に関する研究も報告されている (遠藤ら 1988, 越部ら 1991, 遠藤 1994, 岸本ら 1995)。遠藤らは、構音器官の複雑な非言語的運動と発話との関連性について検討し、非言語的段階の障害が非流暢な構音の一因になっている可能性を示唆している (遠藤ら 1988, 遠藤 1994)。本例の場合も /i/, /e/ の産生のため舌位置を固定させようとする、かえって舌に力が入って舌尖が不随意に上下運動を開始したり、舌が口腔内で丸まるなどの錯行為となったことから、口部顔面失行が本例の構音障害に影響をもたらしている可能性が示唆された。しかし、舌打ちや咳も意図的には困難であったにもかかわらず、類似した動きと思われる /t/, /k/ が産生可能であったことを考え合わせると、/i/, /e/ の産生困難にはほかの要因の関与も否定できない。ただ、舌を口腔内の適切な位置に適切な形で固定しなければならぬ母音 /i/, /e/ の音声と、動きを伴う

ことで産生される /t/, /k/ 音では必要とされる構音運動が異なり、結果として本例のような症状がもたらされた可能性も考えられる。これについては、今後同様の症例の報告を積み重ねて検討してゆく必要があると考えている。

5. 前弁蓋部症候群 (Anterior operculum syndrome) との関連

前頭葉下部にある弁蓋部領域の両側または一側の選択的障害により、意図性と自動性の乖離を伴う下部脳神経麻痺を生じる現象は、「前弁蓋部症候群 (Anterior operculum syndrome)」として知られている (Mao ら 1989)。本例においても、母音 /i/, /e/ の選択的障害については、情動的場面ではごくまれにはあるが産生されることがあり、また、意図的には舌を口腔内の適切な位置に固定できないにもかかわらず、自動的には固定できたり、容易に挺舌することができたりした。このことから、本例の母音 /i/, /e/ の産生障害における意図性と自動性の乖離には前弁蓋部症候群 (Anterior operculum syndrome) の影響も考えられる。

まとめ

最後に、本例のように急性期には皮質性の失構音と診断できる症例の回復過程には、失構音のみでは説明できない、さまざまな特徴的な言語症状を伴うことがあることから、長期的な言語症状の注意深い観察が必要であると思われる。

文 献

- 1) 芦名祐子, 鈴木匡子, 山鳥 重, ほか: Broca失語に伴う構音障害について—構音のレパートリー性からみた anarthria についての一考察 (会). 失語症研究, 18: 19, 1998.
- 2) Alajouanine, T.: Verbal realization in aphasia. Brain, 79: 1-28, 1956.
- 3) Bernthal, J.E., Bankson, N.W.: Articulation and phonological disorders. Allyn & Bacon, Boston, 1998 (船山美奈子, 岡崎恵子, 監訳: 構音と音韻の障害. 協同医書出版社, pp. 6-30, 2001).
- 4) Darley, F.L., Aronson, A.E., Brown, J.R.: Motor speech disorders. Sanders, Philadelphia,

2003 年 12 月 31 日

(279) 29

- 1975.
- 5) 遠藤邦彦, 牧下英夫, 谷崎義生, ほか: 構音失行の純粹例で認められた構音器官の非言語的運動の障害について. 失語症研究, 8: 224-236, 1988.
 - 6) 遠藤邦彦: 口・顔面失行 (BFA) の症状と責任病巣: 行動理論からみた失行症の出現のメカニズム. 失語症研究, 14: 1-10, 1994.
 - 7) 橋爪道子, 斎藤裕恵, 小関公一, ほか: 発症当時 dysarthria と診断された慢性期重度 anarthria の訓練の試み (会). 失語症研究, 16: 70, 1996.
 - 8) Ichikawa, K., Kageyama, Y.: Clinical anatomic study of pure dysarthria. Stroke, 22: 809-812, 1991.
 - 9) 伊藤元信: 失語に関連する言語障害. 失語症臨床ハンドブック (波多野和夫, 藤田郁代, 編. 濱中淑彦, 監). 金剛出版, 東京, 1999, pp.452-457.
 - 10) 岸本充代, 堂園浩一郎, 蜂須賀研二, ほか: 純粹語啞と口腔顔面失行. 総合リハ, 23: 971-977, 1995.
 - 11) Kim, J.S.: Pure dysarthria, isolated facial paresis, or dysarthria-facial paresis syndrome. Stroke, 25: 1994-1998, 1994.
 - 12) 越部裕子, 宇野 彰, 紺野加奈江, ほか: 純粹語啞例における非構音時の高次口腔顔面動作と構音の関係について—口腔顔面動作訓練と構音訓練—. 失語症研究, 11: 262-270, 1991.
 - 13) Mao, C.C., Coull, B.M., Colper, L.A.C.: Anterior operculum syndrome. Neurology, 39: 1169-1172, 1989.
 - 14) Marie, P.: Revision de la question de l'aphasie; la troisieme circonvolution frontal gauche ne joue aucun role speciale dans la fonction du langage. Sem. Med., 21: 241-247, 1906.
 - 15) Mori, E., Yamadori, A., Furumoto, M.: Left precentral gyrus and Broca's aphasia: A clinicopathologic study. Neurology, 39: 51-54, 1989.
 - 16) 中嶋敏子: 重篤な語音産生障害が長期に及んだ純粹語啞症例. 失語症研究, 17: 313-318, 1997.
 - 17) 進藤美津子, 加我君孝, 田村洋子: 純粹語啞の 1 例—3 年間の経過の分析— (会). 音声言語医学, 32: 53-54, 1991.
 - 18) Whitty, C.W.M.: Cortical dysarthria and dysprosody of speech. J Neurol Neurosurg Psychiatry, 27: 507-510, 1964.
 - 19) 山鳥 重: 神経心理学入門. 医学書院, 東京, 1985.
 - 20) 吉野眞理子: 発語失行 (apraxia of speech). 神経心理学, 38: 588-596, 1994.

■ Abstract

Impairment of selective vowel articulation in a patient with anarthria following infarction of the left central gyrus and adjacent subcortical area

Keiko Shibakiri* Yukihiro Yoneda** Atsushi Yamadori***

We report on a patient with anarthria following an ischemic stroke of the left central gyrus and adjacent subcortical area, who continuously exhibited selective impairment in articulation of the two vowels /i/and/e/.

The patient was a 72-year-old right-handed male with a history of myocardial infarction who suddenly developed mutism and right hemiparesis. MRI showed an infarction in the left pre- and post-central gyrus, extending to the adjacent subcortical area, and other small old infarctions in the bilateral subcortical areas. The lowest part of the left precentral cortex was intact. During the acute phase of illness, the patient was mute but could fully communicate by means of writing and gestures. He exhibited a buccofacial apraxia and minor agramatism in writing. Over the next few months, despite complete articulations of the other three vowels and all consonants except /j/, the patient selectively and persistently showed impairment in articulations of the two vowels /i/and/e/. In emotional situations, the patient could often produce the two vowels.

We speculate that a combination of anarthria and dysarthria, the former characterized by inconsistent dysarticulation and the latter by consistent dysarticulation, constitutes a possible mechanism for producing a unique linguistic impairment of this kind in this patient. We also discuss possible an involvement of “anterior opercular syndrome” characterized by automatico-voluntary dissociation of the lower cranial nerve functions.

*Neuropsychology Section of Department of Rehabilitation, Hyogo Brain and Heart Center at Himeji.

520 Saisho-ko, Himeji-shi, Hyogo 670-0981, Japan

**Neurology Service, Hyogo Brain and Heart Center at Himeji

***Department of Humanities and Sciences, Kobe Gakuin University