

## Zaburzenie obsesyjno-kompulsyjne i tiki chroniczne u chłopca z dysgenezją ciała modzelowatego

*Obsessive-compulsive disorder and chronic tics in a boy with dysgenesis of the corpus callosum*

ANITA BRYŃSKA, TOMASZ WOLAŃCZYK

Z Kliniki Psychiatrii Wieku Rozwojowego Akademii Medycznej w Warszawie

**STRESZCZENIE.** Przedstawiono przypadek 11-letniego chłopca skierowanego do Kliniki z powodu objawów obsesyjno-kompulsyjnych i przewlekłych tików, u którego stwierdzono dysgenezję ciała modzelowatego. Autorzy dyskutują wzajemne zależności wymienionych zaburzeń.

**SUMMARY.** A case is presented of a boy aged 11 years, referred to the Clinic because of obsessive-compulsive symptoms and chronic tics, in whom callosal dysgenesis was diagnosed. Mutual relationships between these disorders are discussed.

**Słowa kluczowe:** zaburzenie obsesyjno-kompulsyjne / dysgenezja spoidła wielkiego / tiki chroniczne / diagnostyka / opis przypadku

**Key words:** obsessive-compulsive disorder / dysgenesis of corpus callosum / chronic tics / diagnostics / case study

Zaburzenia rozwojowe spoidła wielkiego (całkowity brak lub częściowe zaburzenie rozwoju) należące do grupy wad rozwojowych struktur linii środkowej są częstym elementem składowym kilku zespołów neurologicznych o różnej etiologii i są wywołane zaburzeniami migracji. Najczęściej zaburzenie rozwoju dotyczy tylnej części ciała modzelowatego, jakkolwiek odnotowano również przypadki niedorozwoju części przedniej [Aicardi i wsp. 1987, Barkovich i Norman 1988]. Wadom tym zazwyczaj towarzyszy nieprawidłowa budowa komory trzeciej oraz często zaburzenia w rozwoju wężomózgowia, czy też wady w obrębie innych narządów, np. w układzie moczowo-płciowym. Jest to zaburzenie stosunkowo częste, jakkolwiek rzeczywiste rozpowszechnienie nie zostało ustalone. Wg Myrianthopoulos [1974] występuje z częstością 1/20 tys., natomiast Jeret i wsp. [1985, 1986] zdiagnozował

33 przypadki na 1447 badań CT mózgu. Rozpoznanie najczęściej jest stawiane u osób z objawami neurologicznymi, bądź podczas badania anatomopatologicznego.

Etiologia tego zaburzenia jest różnorodna, do końca nie wyjaśniona. Wada może występować pod postacią zespołu objawów lub nie i wtedy przebiega najczęściej bezobjawowo [Lacey 1985, Jeret i wsp. 1987]. W przypadkach nie przebiegających pod postacią zespołu, uwarunkowania genetyczne są rzadkie, jakkolwiek opisano kilka przypadków, w których udowodniono dziedziczenie autosomalne recesywne, autosomalne dominujące [Aicardi i wsp. 1987] oraz sprzężone z płcią. Opisywane były również defekty genetyczne w postaci trisomii 18, trisomii 13 i trisomii 8. Czynniki środowiskowe, które mogą zadecydować o powstaniu tej wady – to przede wszystkim zespół alkoholowy u płodu [Jones i wsp. 1973] oraz endogenne czynniki

toksyczne, np. kwasica mleczanowa [Chow i wsp. 1987], hiperglicynemia [Dobyns 1989] lub inne efekty metaboliczne. Niektórzy autorzy sugerują udział zaburzeń naczyniowych w etiologii wady.

Izolowany niedorozwój spoidła wielkiego może nie powodować żadnych objawów, u części dzieci z tym zaburzeniem obserwuje się dyskretne zaburzenia w badaniach neuropsychologicznych i zaburzenia koordynacji ruchowej. Obserwowane objawy neurologiczne zależą często od innych współistniejących wad mózgu. Najczęściej obserwuje się upośledzenie rozwoju umysłowego, napady padaczkowe (każdego typu, najczęściej ogniskowe), rzadziej niedowłady spastyczne, zespoły pozapiramidowe [Aicardi i wsp. 1987], hiperteloryzm. Stosunkowo często u dzieci z tego typu wadą występują objawy ogólnej niezręczności ruchowej. Rozpoznanie wady przeprowadza się w oparciu o badania metodami neuroobrazowania, np. USG, CT oraz MRI. Leczenie jest objawowe, odpowiednie do stwierdzanych objawów neurologicznych.

W tej pracy przedstawiamy przypadek 11-letniego chłopca z zaburzeniem obsesyjno-kompulsyjnym i współwystępującymi tikami chronicznymi, u którego w badaniu tomograficznym głowy stwierdzono częściowy brak ciała modzelowatego. Podejmujemy dyskusję nad osobliwościami obrazu klinicznego u opisywanego pacjenta i ich ewentl. powiązaniach ze stwierdzoną wadą ośrodkowego układu nerwowego (o.u.n.). Zarówno w zaburzeniu obsesyjno-kompulsyjnym (OCD, *obsessive-compulsive disorder*), jak i w tikach stwierdza się w badaniach metodami neuroobrazowania różnego typu nieprawidłowości, których związki etiopatogenetyczne z wymienionymi zaburzeniami nie są jednoznaczne.

## OPIS PRZYPADKU

11-letni chłopiec urodzony z pierwszej, fizjologicznej ciąży, z porodu siłami natury, o czasie. Rozwój psychoruchowy w okresie niemowlęcym i wczesnego dzieciństwa pra-

widłowy. W rodzinie nie występowały choroby psychiczne, neurologiczne, upośledzenie umysłowe. Od klasy „0” miał problemy z czytaniem, pisanem, z zajęciami, które wymagały dobrej sprawności manualnej, trudności z koncentracją uwagi.

W 9 r.ż. u chłopca pojawiły się proste tiki motoryczne oraz objawy obsesyjno-kompulsyjne w postaci wielokrotnego powtarzania pewnych słów, natrętnego wykonywania skłonów podczas chodzenia, podskakiwania, czynności natrętnych związanych z zachowaniem porządku i symetrii (zwłaszcza podczas ubierania się), wielokrotnego upewniania się i pytania, niemożności zakończenia rozpoczętej czynności.

Przyjęty do kliniki w 11 r.ż. z powodu zaostżenia objawów obsesyjno-kompulsyjnych. W badaniu fizykalnym bez odchyień od stanu prawidłowego. W badaniu neurologicznym, poza bardzo trudnymi do wywołania odruchami ze ścięgna Achillesa i kolanowymi, bez zmian. Badania laboratoryjne bez odchyień. W badaniu psychiatrycznym – prawidłowo zorientowany allo- i autopsychicznie, nastrój wyrównany, napęd psychoruchowy nieco wzmożony, bez objawów wytwórczych. W Klinice obserwowano objawy obsesyjno-kompulsyjne w postaci wielokrotnego sprawdzania, dotykania przedmiotów, potrzeby zachowania porządku i symetrii, rytuałów czystościowych (zrytualizowane opłukiwanie się przed wyjściem z wanny), natrętnego powtarzania pewnych sformułowań, obawy, że matce może przytrafić się coś złego oraz tiki ruchowe: ruchy ramionami, marszczenie czoła, pochylenie się.

CT mózgu uwidocznilo częściowy brak ciała modzelowatego. Tkanka mózgowa bez zmian ogniskowych. Zachowane zróżnicowanie pomiędzy istotą białą i szarą. W wykonanym przy przyjęciu badaniu EEG stwierdzono prawidłową czynność podstawową z pojedynczymi falami ostrymi w okolicy potylicznej i prawej skroniowej oraz falami theta w seriach uogólnionych napadowych. Hw nasilało zmiany – więcej napadowych, uogólnionych wyładowań fal ostrych, poron-

nych ostra z wolną, z zaznaczoną opozycją faz. W badaniu video-EEG (wykonanym po 1,5 roku) w czasie 4 godzin badania po bezsennej nocy, w czuwaniu i śnie fizjologicznym nie zarejestrowano napadowych zmian zachowania. W czasie zasypiania pojedyncze zrywania w obrębie mięśni kończyn górnych, bez towarzyszących zmian w zapisie EEG. Zapis EEG z zachowaną czynnością podstawową i pojedynczymi falami theta w obu okolicach skroniowych, z przewagą po stronie prawej. W czasie Hw kilka uogólnionych wyładowań fal theta, trwających 1–2 sekundy, bez wpływu na liczenie i zapamiętywanie. Rozpoznano łagodne mioklonie przysenne.

W badaniu psychologicznym – prawidłowy rozwój intelektualny, na poziomie przeciętnej (mierzony skalą WISC-R), trudności typu dyslektycznego, cechy zahamowania, kłopoty w adaptacji, w wyrażaniu potrzeb i uczuć, lękowość, niepewność.

Rozpoznano zaburzenie obsesyjno-kompulsyjne i tiki chroniczne u chłopca z częściowym niedorozwojem spoidła wielkiego.

Zastosowano leczenie klomipraminą w dawce 2 mg/kg/die oraz terapię ekspozycyjną. W efekcie uzyskano ustąpienie większości objawów obsesyjno-kompulsyjnych. W dwa lata po leczeniu chłopiec był bez objawów. Obecnie utrzymują się jedynie nieznacznie nasilone tiki ruchowe nie zaburzające funkcjonowania chłopca.

## KOMENTARZ

Chociaż etiologia zaburzenia obsesyjno-kompulsyjnego w dalszym ciągu nie jest do końca poznana, to istnieje wiele dowodów na to, że OCD jest schorzeniem neuropsychiatrycznym, heterogennym pod względem etiologicznym. Badania genetyczne przeprowadzone w rodzinach chorujących pacjentów sugerują, że niektóre, występujące rodzinnie formy OCD mogą być związane ze specyficzną, genetyczną predyspozycją [Pauls i wsp. 1995]. Efekty leczenia klomipraminą oraz innymi blokerami zwrotnego wychwytu serotoniny potwierdzają udział

tego właśnie neurotransmitera w etiologii OCD [Barr i wsp. 1992], jakkolwiek inne badania dostarczają dowodów na udział wielu innych neurotransmiterów w patogenezie omawianego zaburzenia [Hamburger i wsp. 1989]. Z drugiej strony, opisy przypadków sugerują dysfunkcję hormonalną [Swedo i Leonard 1992]. Badania przeprowadzane wśród dorosłych pacjentów z OCD dowodzą istnienia zaburzeń w strukturach obejmujących korę czołową, jądra podstawne oraz układ limbiczny [Swedo i wsp. 1989, Baxter i wsp. 1992]. Dalszych dowodów potwierdzających neurobiologiczne tło OCD dostarczają wyniki badań EEG, w którym występuje wiele nieprawidłowości (nie u wszystkich chorych), nie dających się jednak przyporządkować określonej wzorowi czynności bioelektrycznej. Ostatnie badania wiążą rozwój OCD z chorobami infekcyjnymi, tzn. objawy mogą pojawiać się lub zaostrzać w wyniku zakażenia paciorkowcem beta-hemolizującym z grupy A [Allen i wsp. 1995].

W naszej pracy opisujemy nienapotkany, jak dotąd, w piśmiennictwie przypadek współwystępowania zaburzenia obsesyjno-kompulsyjnego (rozpoznanego na podstawie kryteriów DSM-IV) i częściowego niedorozwoju spoidła wielkiego. Na podstawie przytoczonej historii choroby, trudno oczywiście dowieść przyczynowego związku pomiędzy częściowym niedorozwojem spoidła wielkiego a zaburzeniem obsesyjno-kompulsyjnym. Jakkolwiek nie ma jednoznacznego obrazu klinicznego (zespołu objawów) wiążącego się z dysgenezą lub agenezją spoidła wielkiego, to w przypadku naszego pacjenta zespół stwierdzanych u niego zaburzeń psychicznych (zaburzenie obsesyjno-kompulsyjne, tiki ruchowe, zaburzenia koncentracji uwagi, specyficzne trudności szkolne) można odnieść zarówno bezpośrednio, jak i pośrednio, do stwierdzanej wady. Być może w części obserwowane objawy kliniczne mogą być jedynie nieswoiście związane ze stwierdzaną wadą i stanowić następstwo zwiększenia biologicznej, osobniczej podatności na zranienie.

## PIŚMIENNICTWO

1. Aicardi J.: The future of clinical child neurology. *J. Child. Neurol.* 1987, 2, 152–159.
2. Allen G.B., Leonard H.L., Swedo S.E.: Case study: a new infection-triggered, autoimmune subtype of pediatric OCD and Tourett's syndrome. *J. Am. Acad. Child. Adolesc. Psychiatry* 1995, 34, 307–311.
3. American Psychiatric Association. Diagnostic and statistical manual of mental disorders. 4th ed., rev. Am. Psychiatric Assn, Washington DC 1995.
4. Barkovich A.J., Norman D.: Anomalies of the corpus callosum: correlation with futher anomalies of the brain. *Am. J. Neuroradiol.* 1988, 9, 493–501.
5. Barr L.C., Goodman W.K., Price L.H i wsp.: The serotonin hypothesis of obsessive-compulsive disorder: implications of pharmacologic challenge studies. *J. Clin. Psychiatry* 1992, 53, 17–28.
6. Baxter L.J., Schwartz J.M., Bergman K.S. i wsp.: Caudate glucose metabolic rate changes with both drug and behavioral therapy for obsessive-compulsive disorder. *Arch. Gen. Psychiatry* 1992, 49, 681–689.
7. Chow C.W., Anderson R.McD., Kenny G.C.T.: Neuropathology in cerebral lactic acidosis. *Acta Neuropathol.* 1987, 74, 393–396.
8. Dobyms W.B.: Agenesis of the corpus callosum and gyral malformations are frequent manifestation of nonketotic hyperglycinemia. *Neurology* 1989, 39, 817–820.
9. Hamburger S.D., Swedo S., Whitaker A., Davies M., Rapoport J.: Growth rate in adolescents with obsessive compulsive disorder. *Am. J. Psychiatry* 1989, 146, 5, 652–655.
10. Jeret J.S., Serur D., Wisniewski K., Fish C.: Frequency of agenesis of the corpus callosum in the developmentally disabled population as determined by computerized tomography. *Pediatric Neurosci.* 1985–1986, 12, 101–103.
11. Jeret J.S., Lubin R.A.: Clinicopathological findings associated with agenesis of the corpus callosum. *Brain Dev.* 1987, 9, 255–264.
12. Jones K., Smith D.W., Ulleland C., Streissguth A.P.: Pattern of malformations in offspring of chronic alcoholic mothers. *Lancet* 1973, 1, 1267–1271.
13. Lacey D.J.: Agenesis of corpus callosum: clinical features in 40 children. *Am. J. Dis. Child* 1985, 139, 953–955.
14. Myriantopoulos N.C., Chung C.S.: Congenital malformations in singletons: epidemiologic survey. *Birth Defects* 1974, 10, 1–58.
15. Pauls D.L., Alsobrook J.P., Goodman W. i wsp.: A family study of obsessive-compulsive disorder. *Am. J. Psychiatry* 1995, 152, 76–84.
16. Rasmussen S.A., Eisen J.L.: The epidemiology and differential diagnosis of obsessive compulsive disorder. *J. Clin. Psychiatry* 1992, 53, suppl. 4, 4–10.
17. Swedo S.E., Leonard H.L.: A review of obsessive-compulsive disorder in children and adolescents. *Int. Pediat.* 1992, 7, 151–160.
18. Swedo S., Schapiro M.B. i wsp.: Cerebral Glucose metabolism in childhood-onset obsessive-compulsive disorder. *Arch. Gen. Psychiatry* 1989, 46, 518–523.

*Adres: Dr Anita Bryńska, Klinika Psychiatrii Wieku Rozwojowego AM,  
ul. Marszałkowska 24, 00-576 Warszawa*