

# Klinische aspecten van vrouwen met craniële hyperostosis in een psychiatrisch centrum\*

door J. J. C. Marlet\*\*

## Inleiding

Bijna 15 jaar geleden vond ik bij enkele lijdsters aan (manisch-) depressieve psychosen, die vaak recidiven vertoonden en relatief veel tijd nodig hadden om weer op verhaal te komen, een hyperostosis frontalis interna (h.f.i.). Omdat één van deze vrouwen bovendien zeer dik en mannelijk behaard was – het trias van Morgagni te zien gaf – maar tevens omdat ik voor mogelijk hield dat er een verband zou kunnen bestaan tussen de frontale botwoekering en de duur van de psychose, werd van toen af de schedelröntgenfoto toegevoegd aan het routineonderzoek bij nieuwe patiënten in ons centrum.

De interesse voor craniële hyperostosis was gewekt. Bestudering van de literatuur dienaangaande bracht ups en downs teweeg in mijn geloof aangaande de klinische betekenis van het trias van Morgagni en riep twijfels op aan de mogelijkheid om bruikbare positieve correlaties van hyperostosis met welke relevante bevinding dan ook te constateren. Het zoeken naar een samenhang tussen craniële hyperostosis en de duur van een psychotische verwickeling gaf ik op omdat in desbetreffende proefopstellingen teveel variabelen overbleven. Ik stiet bovendien op talrijke onopgeloste vragen welke zonder specialistische kennis van meerdere onderdelen van de geneeskunde bezwaarlijk te bewerken zijn. Mijn pogingen om toch enige verheldering te brengen in deze problematiek heb ik vastgelegd in een korte serie artikelen: *Familiair voorkomen van craniële hyperostosis* (1972), *Over beenvorming in de dura mater bij dieren en mensen* (samen met H. H. J. Jaspar, 1974), *Development of Cranial hyperostosis* (1974) en *On the Relation between Cranial Hyperostosis and Endocrinic Factors* (1975). Aan de lezers van dit tijdschrift wil ik de voorlopige afronding van deze studie voorleggen aan de hand van een vergelijking van bepaalde klinische bevindingen bij drie reeksen vrouwelijke psychiatrische patiënten uit 'St. Anna'.

\* Opgedragen aan mijn voorganger H. J. P. M. Kortman, die mij tijdens zijn ambtsperiode tot dit onderzoek stimuleerde.

\*\* Zenuwarts, geneesheer-directeur van het psychiatrisch centrum 'St. Anna' te Venray.

Het gaat hier om 100 patiënten die achtereenvolgens in ons centrum werden opgenomen in de periode 1962–1963, om een serie van 100 opgenomenen in de periode 1964–1966 die blijkens röntgenonderzoek géén hyperostosis van de schedelbeenderen hadden en om een serie van 100 patiënten in 'St. Anna' bij wie achtereenvolgens in de periode 1966–1971 enige variant van craniële hyperostosis werd aangetroffen. De bedoeling van dit studiedeel is na te gaan of er redenen zijn om te veronderstellen dat er een samengang is – of misschien zelfs een samenhang – van craniële hyperostosis, in het bijzonder h.f.i., met een te omlijnen psychopathologie bij vrouwelijke verpleegden in een psychiatrisch centrum, en voorts of het trias van Morgagni en daarvan afgeleide syndromen in dit kader van betekenis zijn. Bladerend in de dossiers van deze 300 patiënten en mij opnieuw voor de geest halend wat er met deze vrouwen allemaal gaande was en ten dele nog is, drong zich de gedachte aan mij op dat de formulering van een overwegend descriptieve psychiatrische diagnose alsook het weergeven van geselecteerde somatische gegevens, om niet te spreken van de transformatie van persoonlijke data in maat en getal, een onbehoorlijke reductie is welke zich nauwelijks met een wetenschappelijke motivering laat verantwoorden. De huiver om zoveel mensen door een frame heen te persen, zal wellicht sporen nalaten in de hieronder volgende bewerking.

### Oriëntering terzake de vraagstelling vanuit de literatuur

Morgagni, patholoog-anatoom, beschreef in 1719 een vrouw die op 75-jarige leeftijd plotseling was overleden aan een hartruptuur. Ze was na haar 45e jaar aanmerkelijk dikker geworden en toonde tekenen van virilisme. Zij zou gedurende haar laatste levensjaren veel aan hoofdpijn hebben geleden. Bij obductie vond Morgagni na schedelopening aan de binnenzijde van het os frontale een symmetrisch gelocaliseerde, hobbelige beenwoekering, door hem een frontale exostose genoemd. De dura was hecht met de woekering verbonden. De hersenvaten toonden atherosclerotische veranderingen. Van de opvatting dat exostoses aan de binnenzijde van het voorhoofdsbeen gevolg zijn van congesties, is Beadles (1898) een vertegenwoordiger. Deze congesties zouden door emoties worden tegeweeggebracht. Daarom zou dit beenwoekeringsproces, dat Beadles in 21% van zijn neuro-psychiatrisch patiëntenmateriaal aantrof, vooral bij geesteszieken voorkomen. De Engelse psychiater Stewart (1928) beschouwde de hyperostosis conditie als een syndroom waarbij frontale hyperostosis, obesitas en virilisme van hypofysaire aard geacht werden te zijn. Hij kwam, gezien zijn patiëntenmateriaal, tot de overtuiging dat aan het trias van Morgagni ook nog stoornissen van psychische en neurologische aard (vooral dementie) moesten worden toegevoegd.

De betiteling 'hyperostosis frontalis interna' stamt van de Frans-Zwitserse neuroloog Ferdinand Morel (1930), die deze term in zijn gelijknamige monografie claimde voor een 'hyperostose symétrique

interne' beperkt tot het os frontale, zonder verandering van de tabula externa en zonder afwijkingen in andere delen van het skelet. Uit een analyse van 17 eigen patiënten en gevallen uit de literatuur postuleerde hij een syndroom bestaande uit hyperostosis frontalis interna, 'adipose symétrique, rhizomélique et mediane du corps' en 'troubles cérébraux particuliers'. Morel registreerde bij deze patiënten stoornissen in de kalkstofwisseling, adipositas, voedingsstoornissen (zoals polyfagie, polyurie, polydipsie), slaapstoornissen en visusklachten, welke volgens hem deel uitmaken van een 'ensemble de symptômes infundibulo-tubériens' en daarnaast rechtstreeks gevolgen van de hyperostosis zoals hoofdpijn en toevallen. Hij zag slechts in enkele gevallen viriele beharing. Morel nam aan, dat de 'symptômes associés' te wijten waren aan een hypofysaire dysfunctie welke berustte op een aandoening van het tuber cinereum, terwijl hij de hyperostosis frontalis interna zelf primair veroorzaakt dacht doordat de met het os frontale vergroeide dura mater gedurende de nachtelijke lig-uren tractie op het bot uitoefende. Als een hommage aan Morel maar ook aan Stewart die vooral de klinische symptomatologie beschreef, werden aan de samenhang van hyperostosis frontalis interna, obesitas en neuro-psychiatrische stoornissen hun beider namen verbonden en ging dit complex als syndroom van Stewart-Morel de wereldliteratuur in.

Met Sherwood Moore (1935-1936) deed het röntgenologisch onderzoek zijn definitieve intrede op het gebied van de hyperostosis-problematiek. Hij beoordeelde de schedelfoto's van ongeveer 6000 patiënten uit algemene ziekenhuizen en stelde in 72 gevallen (1,2%) hyperostosis frontalis interna vast. In zijn tweede studie voegde hij aan dit materiaal nog 695 patiënten toe tot een totaal van 6650. Tevens bracht hij een differentiatie aan in de verdikkingen van de tabula interna: nebula frontalis, hyperostosis frontalis interna, hyperostosis fronto-parietalis en hyperostosis calvariae diffusa. Moore maakte verslagen over 193 patiënten en een persoonlijke studie van 6 patiënten, en vond dat bepaalde nerveuze en metabolische verschijnselen bij patiënten met craniële hyperostosis meer naar voren kwamen dan bij ziekenhuispatiënten in het algemeen. Daarbij bleek hem dat patiënten met overeenkomstige klinische verschijnselen ongeveer even vaak een diffuse vorm van hyperostosis vertonen als hyperostosis frontalis interna. Volgens Moore hebben beide typen van wat hij noemde 'metabolic craniopathy' dezelfde aetiologie, maar is er geen bewijs voor dat een hypofyse aandoening de hyperostosis veroorzaakt. Hij erkende het bestaan van het syndroom van Morgagni-Stewart-Morel maar stelde dat de facetten hyperostosis frontalis interna, obesitas en virilisme slechts zelden volledig en tezamen tot ontwikkeling komen, terwijl de neuro-psychiatrische verschijnselen meer of minder constant worden gevonden. In zijn laatste publikatie (1955), waarin hij een bewerking biedt van zijn totale materiaal - 10.064 patiënten - prefereerde hij de term 'hyperostosis cranii' boven de naar een onvoldoende bewezen aetiologie verwijzende term 'metabolic craniopathy'.

Folke Henschen (1937) ontkennde het bestaan van het syndroom van Stewart-Morel op grond van nauwkeurige obductie van 122 vrouwen boven de 40 jaar waarvan 67 zonder en 55 met hyperostosis frontalis interna. Volgens hem is er geen enkel oorzakelijk noch ander verband tussen hyperostosis en algemene atrofie van de hersenen, en berust het in psychiatrische instituten vaak waargenomen samengaan van deze aandoeningen op de leeftijd en op de soort van patiënten bij wie in deze inrichtingen lijkschouwing wordt gedaan. Hij zag wel een verband tussen hyperostosis, vetzucht en sterke beharing van kin en bovenlip bij vrouwen, beperkte daarom het syndroom tot het oorspronkelijke trias van Morgagni en rekende tot het volledige ziektebeeld – zoals dit vooral bij oudere vrouwen voorkomt – ook een atrofie van het voorste gedeelte van de frontale hersenen. In een latere publikatie (1944) bevestigde Henschen deze mening aan de hand van obducties bij 700 vrouwelijke patiënten. Hij gaf toen toe dat hyperostosis frontalis interna niet zelden samengaat met een diffuse hyperostosis, maar hield staande dat alleen de hyperostosis frontalis interna als conditie voor het syndroom van Morgagni van belang is. Evenals Beadles, Morel e.a. achtte hij het waarschijnlijk dat de hypofyse een gewichtig aandeel heeft in de aetiologie van het syndroom. Bovendien sprak hij als zijn mening uit dat hyperostosis frontalis interna behoort tot de tertiaire geslachtskenmerken van het vrouwelijk climacterium.

In 1947 verscheen een kritische studie van Jørgen Pedersen over 908 vrouwen bij wie hij röntgenografisch in 9,75% hyperostosis frontalis interna aantrof. Hij onderscheidde de hyperostosis varianten gemakshalve in twee categorieën: hyperostosis frontalis interna en hyperostosis intertabularis (seu calvariae diffusa), en bevond dat deze beide typen van hyperostosis dezelfde correlatie hebben met leeftijd, adipositas en hypertrichosis. Dat zijn van hormonale origine zijn, leek hem boven twijfel verheven. Pedersen hechtte aan het trias van Morgagni geen bijzondere betekenis en tekende eveneens bezwaar aan tegen het syndroom van Stewart-Morel. Een interessante bevinding van Pedersen is nog dat bij diabeticae na het 40e jaar vaker hyperostosis (vooral intertabularis) voorkomt dan bij normale vrouwen van dezelfde leeftijd.

De uiteenlopende en elkaar tegensprekende conclusies van talloze andere bezoekers over craniële hyperostosis en daarmee samenhangend somatische en psychiatrische beelden laat ik hier verder onvermeld omdat onze landgenote Meyer in haar proefschrift (1956) deze literatuur zorgvuldig uitploos. Zij kwam tot de gevolgtrekking dat van enig specifiek verband tussen hyperostosis frontalis interna en psychiatrische stoornissen geen sprake kan zijn en dat over het bestaan van het trias van Morgagni en het syndroom van Stewart-Morel geen eenstemmigheid heerst. Mayer (1962), die in het kader van zijn vergelijkend patholoog-anatomisch onderzoek in de psychiatrische universiteitskliniek van Genève het trias van Morgagni vaker aantrof dan wegens het toeval mocht worden verwacht, kon evenmin enige aanwijzing ontdekken voor een psychiatrische ziek-

te welke bij hyperostosis frontalis interna-draagsters predomineert. Op deze plaats zij opgemerkt dat Michaux (1963) uit de literatuur 89 geobserveerde gevallen van hyperostosis frontalis opdierde en opnieuw bestudeerde. Hij concludeerde dat er van een 'préminence d'un trouble particulier' op psychiatrisch gebied geen sprake kon zijn; de grootste groep bestond uit seniele en arteriosclerotische dementieën.

In de door Hawkins en Martin (1965) opgemaakte tabel, waarin de diagnoses vergeleken worden van 50 vrouwelijke patiënten met hyperostosis frontalis interna en 50 patiënten zonder deze botwoeking uit dezelfde leeftijdsgroepen, zijn de ouderdomspsychosen naar de derde plaats geschoven. Deze vanuit het Fulbourn Hospital gemaakte tabel ziet er als volgt uit.

psychiatrische diagnose	hyperostosis frontalis interna	
	+	-
	aantal	aantal
schizofrenie	23	19
manisch-depressieve psychose	14	17
seniele psychosen	7	5
zwakzinnigheid + andere psychose	2	3
symptomatische psychose	1	5
diverse psychosen	3	1
totale aantal patiënten	50	50

De numerieke verschillen per diagnose in de vergeleken groepen zijn niet significant.

De tegenstelling tussen de auteurs die hyperostosis frontalis interna beschouwen als onderdeel van een bepaald symptomencomplex en de onderzoekers die menen dat de botwoeking aan de binnenzijde van het os frontale geheel op zich zelf staat, is inmiddels afgezwakt door het werk van Scotto (1965) en van Perou (1964) in wier zienswijze de hyperostosis frontalis interna opdoemt als een constitutionele aandoening die al dan niet tot klinische manifestaties voert en slechts onder bepaalde omstandigheden tot ziekelijke syndromen aanleiding geeft. Manfred Bleuler (1954), een psychiater die over psychosyndromen veel informatie heeft verschaft, verkleint de door mij weergegeven probleemschets in de volgende passage over het syndroom van Morgagni-Morel: 'Es ist noch fraglich, ob das als Syndrom beschriebene Zusammentreffen von Hyperostosis frontalis interna mit Fettsucht und Virilismus bei Frauen mehr vorkommt, als dem Zufall nach erwartet werden kann. Alle drei Einzelsymptomen kommen ja häufig ohne die anderen vor. Es ist auch fraglich, was für eine Rolle Hypophyse und Nebennierenrinde bei der Genese zukommt. Sicher ist hingegen, dass die Frauen, bei denen das Syndrom diagnostiziert wurde, in der Mehrzahl der Fälle psychische Störungen aufwiesen. Dem Grade und der Art nach sind sie aber vollkommen verschieden. Die meisten

Zustandsbilder, die die Psychiatrie kennt, sind festgestellt worden. Organische Verblødungen werden besonders oft erwähnt'.

Zelf meen ik in bepaalde correlatieonderzoekingen aangaande hyperostosis frontalis interna een psychopathologische openbaringen iets van een lijn terug te vinden, met name in die onderzoekingen waarbij een descriptieve diagnostiek en niet een nosologische diagnostiek wordt gehanteerd. Zo registreerden Schiff en Trelles (1931) in ettelijke gevallen verschijnselen zoals intellectuele verlangzaming, depressie en angst, temperament- en karakterstoornissen, hypochondrische gevoelsinstellingen en nervositas. Floyd Harding (1949) beschreef als karakteristica van zijn 17 vrouwen met hyperostosis frontalis interna: frontale hoofdpijn, vergeetachtigheid, nerveuziteit, zwaktegevoel, moeheid en neiging tot depressie, afgezien nog van obesitas, hirsutisme, vertigo en visusklachten. Van de 11 vrouwelijke psychiatrische patiënten met hyperostosis frontalis interna, die door Smith en Hemphill (1956) röntgenografisch werden geselecteerd uit het chronische bestand van een psychiatrisch ziekenhuis alsmede uit een reeks acute opnamen in dat instituut, bleken 7 te lijden aan een depressief beeld.

Rümke (1960) legde zijn ervaring aangaande patiënten met hyperostosis frontalis vast in de volgende notitie: 'Het betreft meestal vrouwen. Het zijn veelal sterke persoonlijkheden met neiging tot domineren, in de omgang nogal eens moeilijk. Soms worden epileptische verschijnselen, lichtere of zwaardere schemertoestanden en neiging tot depressies gevonden. De samenhang tussen deze verschijnselen en de objectieve afwijkingen is moeilijk te doorzien'. In ongeveer dezelfde categorieën liggen de observaties van Scotto (1965): stemmingsalteraties, neiging tot melancholie, twistziekte en agressiviteit, soms ook delirante beelden en allerlei psychotische manifestaties (afhankelijk van leeftijd en andere omstandigheden). Steinbach (1966) vond een opvallend hoog percentage hyperostosis frontalis interna bij lijdsters aan een psychasthenisch syndroom. Laatstgenoemde auteur is echter nogal vaag in zijn kwalificatie van dat syndroom. Als hoofdsymptoom van de in dat verband optredende verschijnselen geeft hij aan: een zekere 'Lebensuntüchtigkeit' in enig opzicht.

Deze en dergelijke mededelingen verschaften mij enig houvast voor het desbetreffende deel van het hieronder volgende onderzoek.

## Onderzoek

Gelijk in de inleiding reeds werd aangegeven zijn bij het onderzoek drie groepen betrokken, elk van 100 vrouwelijke patiënten uit het psychiatrisch centrum 'St. Anna'. Groep I is samengesteld uit patiënten bij wie achtereenvolgens in de opnamejaren 1966-1971 röntgenologisch enige variant van craniële hyperostosis werd gevonden. Groep II kwam tot stand door selectie van opnamepatiënten in de periode 1964-1966: zij hadden blijkens röntgenonderzoek generlei vorm van craniële hyperostosis en werden toegerekend tot dat dezelfde aantallen per leeftijdssubgroep werden bereikt als

in groep I. Groep III is een aselechte reeks vrouwen die achtereenvolgens werden opgenomen in de jaren 1962–1963. Deze groep dient voornamelijk om een indruk te geven van de frequentie waarin hyperostosis van de schedelbeenderen wordt aangetroffen. In de vergelijking van klinische gegevens met de groepen I en II heeft groep III een zeer betrekkelijke waarde omdat de leeftijdssamenstelling een andere is.\* In tabel 1 wordt dit leeftijdsverschil zichtbaar.

*Tabel 1:*

leeftijdsindeling der onderzochte groepen			
leeftijd	groep I	groep II	groep III
< 20 jaar	0	0	5
20–29	4	4	18
30–39	18	18	27
40–49	24	24	20
50–59	13	13	14
60–69	18	18	11
70–79	17	17	4
80–90	6	6	1
totalen patt.	100	100	100

De mogelijkheid, dat een zelfde patiënte in meer dan één groep voorkomt, werd uitgesloten.

Het onderzoek valt uiteen in de volgende delen:

- de resultaten van het schedelröntgenonderzoek in de groepen I en III (A);
- vergelijking in de groepen I en II van de klinische kenmerken die samen met hyperostosis frontalis interna het trias van Morgagni vormen (B);
- vergelijking in de groepen I en II van de klinische verschijnselen die volgens opgave van diverse auteurs vaak worden geconstateerd bij patiënten met het trias van Morgagni (C);
- vergelijking van de psychopathologische bevindingen in de groepen I, II en III na een kunstmatige indeling van deze bevindingen in drie categorieën (D).

A – *Röntgenologisch schedelonderzoek* van groep III bracht 34 gevallen van craniële hyperostosis aan het licht. Deze worden in tabel 2 weergegeven in de onderscheiding volgens Moore, met dien verstande dat in dit onderzoek van hyperostosis frontalis interna (h.f.i.) gesproken wordt indien de typische nodulaire uitbottingen

\* In alle groepen werden dezelfde gegevens verzameld. Hoewel de mogelijke invloed van de leeftijdsfactor niet kon worden geëlimineerd, worden hier en daar toch gegevens uit groep III gememoreerd wanneer zulks relevant lijkt. De overige bevindingen in laatstgenoemde groep blijven onvermeld omdat deze in de vergelijking met de groepen I en II tot onbetrouwbare conclusies zouden kunnen leiden.

aan de binnenzijde van het os frontale zichtbaar zijn ongeacht de dikte van dit schedelbeen; voorts dat hyperostosis calvariae diffusa (h.c.d.) wordt aangenomen indien de dikte van het schedeldak op de meeste plaatsen  $\geq 10$  mm. is, en dat bij een combinatie van h.c.d. en h.f.i. de eerstgenoemde variant bij de rangschikking de voorkeur krijgt. (Nebula frontalis wordt in het vervolg afgekort tot n.f. en hyperostosis fronto-parietalis tot h.f.p.)

Tabel 2:  
Hyperostosisvarianten in groep III

leeftijdsgroepen	< 20	20-29	30-39	40-49	50-59	60-69	70-79	80-90	totalen
n.f.			2	1	2				5
h.f.i.	1	3	8	3	5	6	2		28
h.f.p.									0
h.c.d.						1			1
totalen	1	3	10	4	7	7	2		34

Hoe groep I er uit ziet als de indeling van Moore in de door mij gebruikte zin wordt gevolgd, is in tabel 3 tot uitdrukking gebracht.

Tabel 3:  
Hyperostosisvarianten in groep I

leeftijdsgroepen	< 20	20-29	30-39	40-49	50-59	60-69	70-79	80-90	totalen
n.f.		1	2	3	2	3			11
h.f.i.		1	11	16	10	12	15	4	69
h.f.p.			1						1
h.c.d.		2	4	5	1	3	2	2	19
totalen		4	18	24	13	18	17	6	100

B - De uitkomsten van het onderzoek naar het voorkomen van *obesitas en viriele beharing* in de groepen I en II zijn geregistreerd in de tabellen 4 resp. 5. Voor groep I zijn deze uitkomsten opgesplitst over de verschillende hyperostosisvarianten.

Tabel 4:  
Obesitas en viriele beharing in groep I

obesitas viriele beharing	nee	ja	nee	ja	totalen
	nee	nee	ja	ja	
n.f.	5	2	4	0	11
h.f.i.	22	18	14	15	69
h.f.p.	0	1	0	0	1
h.c.d.	10	5	3	1	19
	37	26	21	16	100



*Klinische aspecten van vrouwen met craniële hyperostosis*

Tabel 5:  
Obesitas en viriele beharing in groep II

obesitas	nee	ja	nee	ja	totaal
viriele beharing	nee	nee	ja	ja	
	57	16	16	11	100

C – Bij dit deel van het onderzoek werd gelet op *hypertensie, diabetes, praediabetes, cholesterolgehalte van het bloed, struma (nodososa non toxica), cataract, gynaecologische aandoeningen, neurologische uitvalsverschijnselen en epileptische openbaringen*. Met uitzondering van de drie laatstgenoemde klinische facetten werden al deze gegevens ondergebracht in de tabellen 6 en 7. Voor groep I werden deze gegevens opgesplitst over de Moore 'se hyperostosis varianten. Voor groep II werden die gegevens aangegeven per leeftijdssubgroep. Laatste bedoelde indeling werd bij groep I achterwege gelaten omdat de spreiding van deze gegevens over de leeftijdsdecaden bij de vergeleken groepen niet noemenswaardig verschilde.

Tabel 6:  
Klinische gegevens in groep I

hyperostosis	aantal	hypertensie	diabetes	praediab.	chol. > 7.3m.mol/L	struma	cataract
n.f.	11	1	0	2	1	0	0
h.f.i.	69	26	11	10	2	2	4
h.f.p.	1	0	0	0	0	1	0
h.c.d.	19	5	2	1	2	0	1
totalen	100	32	13	13	5	3	5

Hierbij zij opgemerkt dat bij 10 patiënten van groep I het cholesterolgehalte niet werd gemeten.

Tabel 7:  
Klinische gegevens in groep II

leeftijd	aantal	hypertensie	diabetes	praediab.	chol. > 7.3m.mol/L	struma	cataract
20-29	4	0	0	0	0	0	0
30-39	18	1	1	2	3	0	0
40-49	24	4	2	1	4	2	1
50-59	13	4	2	1	6	0	0
60-69	18	9	2	5	3	3	1
70-79	17	8	5	0	4	0	1
80-90	6	1	2	0	0	0	3
totalen	100	27	14	9	20	5	6

Volledigheidshalve moet worden vermeld dat in groep II bij 3 patiënten geen g.t.t. werd gedaan en bij 4 patiënten geen cholesterolbepaling werd verricht.

In groep I kwamen 7 patiënten naar voren met een *gynaecologisch lijden*, in groep II 5 patiënten. Duidelijke *neurologische afwijkingen* werden in groep I gevonden bij 9 patiënten, in groep II bij 14 patiënten. Wat betreft *epileptische openbaringen*: deze werden in de groep I en groep II aangetroffen bij 10 resp. 3 patiënten.

D – Bij de rubricering van de *psychopathologische bevindingen* heb ik gebruik gemaakt van de omstandigheid, dat in 'St. Anna' de psychodiagnostische omschrijvingen voornamelijk descriptief zijn. De in de literatuur aanwezige suggesties (zie pg. 39 en 40) aangaande een verband tussen hyperostosis frontalis interna en beelden gekenmerkt door depressie en vitaliteitsverlies alsmede organisch-cerebrale psychosyndromen, waren mede bepalend voor de ietwat facultatief gekozen indeling in drie diagnostische categorieën: overwegend depressieve beelden, overwegend organisch-cerebrale symptomencomplexen en 'andere' beelden (waartoe o.m. paranoïde en autistische beelden werden gerekend. In het proefschrift van Valk over 'Atrofia cerebri bij chronische psychiatrische patiënten' (1971) trof ik een verwijzing aan naar een pneumencefalografisch onderzoek van Haug, die zijn patiënten op soortgelijke wijze in drie groepen onderscheidde: organische psychosen, schizofrenieën en niet schizofrene niet organische psychosen. Haug's indeling is intentioneel niet identiek met de door mij geprefereerde rubricering, maar het zou me niet verbazen als de uiteindelijke samenstelling van de groepen sterk overeenkwam.

In groep I leverde de psychopathologische driedeling een resultaat op dat in tabel 8 is vastgelegd.

Tabel 8:

Psychopathologische bevindingen in groep I

hyperostosis	aantal	depressieve b.	org.-cerebr. b.	andere b.
n.f.	11	5	3	3
h.f.i.	69 (100%)	23 (33%)	21 (30%)	25 (36%)
h.f.p.	1	0	1	0
h.c.d.	19	7	7	5
<b>totalen</b>	<b>100</b>	<b>35 (35)</b>	<b>32 (%)</b>	<b>33 (%)</b>

De uitkomsten van de driedeling in groep II werden in tabel 9 weergegeven. Om de invloed van de leeftijd tot uitdrukking te brengen werden de leeftijdssubgroepen in deze tabel verwerkt.

Tabel 9:

Psychopathologische bevindingen in groep II

leeftijd	aantal	depressieve b.	org.-cerebr. b.	andere b.
20-29	4	0	0	4
30-39	18	10	0	8
40-49	24	4	4	16
50-59	13	2	2	9
60-69	18	6	6	6
70-79	17	0	14	3
80-90	6	0	6	0
totalen	100	22 (%)	32 (%)	46 (%)

In dit deel van de studie wordt ook groep III betrokken. Tabel 10 geeft een indruk van de verhoudingen in die gemêleerde groep c.q. aselechte opnamegroep.

Tabel 10:

Psychopathologische bevindingen in groep III

patt. met hyperost.	aantal	depressieve b.	org.-cerebr. b.	andere b.
n.f.	5	3	2	0
h.f.i.	28 (100%)	17 (60%)	5 (19%)	6 (21%)
h.f.p.	0			
h.c.d.	1	1	0	0
totalen	34 (100%)	21 (62%)	7 (21%)	6 (17%)
patt. zonder hyperost.	66 (100%)	18 (27%)	18 (27%)	30 (45%)
totaal	100			

### Bespreking

Aansluitend op wat reeds is gezegd over de samenstelling van de groepen, kan worden toegevoegd dat de *gemiddelde leeftijd* van groep I 54,28 jaar bedraagt en van groep II 53,78 jaar. Het is begrijpelijk dat dit verschil zeer klein is als men bedenkt dat de aantallen patiënten per leeftijdssubgroep in groep II gelijk zijn aan dezulke in groep I die als uitgangspunt van dit vergelijkend onderzoek werd gekozen. (zie tabel 1). De gemiddelde leeftijd van groep III (42,18 jaar) is beduidend lager. Dat deze groep zoveel jonger is dan groep I hangt samen met de wijze waarop groep III tot stand kwam (aselechte opnamegroep) en verder met de omstandigheid dat craniële hyperostosis op jeugdige leeftijd sporadisch voorkomt. De meeste auteurs constateren bij vrouwen een sterke frequentietoeename van h.f.i. (kwantitatief de belangrijkste hyperostosis variant) in de 4e en 5e decade. Over het verloop van de frequentiecurve na het 50e jaar divergeren de meningen. Eigen onderzoekingen (Mar-

let 1974) leerden dat de frequentie van craniële hyperostosis op hogere leeftijd constant is of iets afneemt.

#### *ad A*

De door mij in groep III gevonden 28 gevallen van h.f.i. (28%, zie tabel 2) betekenen een relatief hoge score in vergelijking tot desbetreffende percentages in de literatuur, die (voor vrouwen) variëren van 3 tot 30%. Groep III is echter een betrekkelijk willekeurig honderdtal, d.w.z. 100 achtereenvolgens in 1962-1963 opgenomen patiënten. Bij de daaropvolgende 100 in 'St. Anna' binnengekomen patiënten vond ik 19% h.f.i.\*). Dat craniële hyperostosis (alle varianten) en in het bijzonder h.f.i in de 4e en 5e decade veel vaker voorkomen dan in jongere leeftijdsgroepen, wordt geadstrueerd door de cijfers in de leeftijdsverdeling van groep I (zie tabel 3) Dit verschil is significant ( $\chi^2 = 31.39$   $p < .01$   $df = 1$ ).

#### *ad B*

De combinatie *obesitas-viriele beharing* (zie tabel 4 en 5) komt in groep I bij 16 vrouwen voor, in groep II bij 11 vrouwen. De iets grotere frequentie van deze samenhang in de hyperostosisgroep geeft weinig voedsel aan de door enkele auteurs gewekte verwachting betreffende een correlatie met craniële hyperostosis (alle varianten tezamen) en is niet significant ( $\chi^2 = .0056$   $df = 1$ ). Lichten we h.f.i. er uit, dan blijken 15 van de 69 vrouwen in groep I (22%) zowel obesitas als viriele beharing te hebben. Dit resultaat bevestigt enigszins de betekenis die door vele auteurs aan het trias van Morgagni wordt toegekend (significant  $\chi^2 = 3.62$   $p > .05$   $df = 1$ ). Het samengaan van h.c.d. met de combinatie *obesitas-viriele beharing* is 1 op 19 (5%). Aan deze uitkomst kunnen gezien het kleine aantal patiënten met h.c.d. in groep I geen conclusies worden verbonden. Wel kan tabel 4 nog dienen ter adstructie van Pedersen (1947) waar deze stelt dat h.f.i. en h.c.d. dezelfde correlatie hebben met obesitas en viriele beharing afzonderlijk. Statistische bewerking van mijn gegevens toont namelijk aan dat de  $\chi^2$ - en (resp. .28 en 2.80) niet significant zijn.

#### *ad C*

Vergelijken we de gegevens in tabel 6 met dezulke in tabel 7, dan

\* Redenen waarom in de literatuur zulke uiteenlopende percentages h.f.i. (bij vrouwen) worden opgegeven, kunnen worden vermoed in de omstandigheid dat sommige auteurs hun onderzoek per obductie verrichten terwijl andere röntgenografisch te werk gingen, voorts in de grootte en de praeselectie van de onderzochte groepen, in de kwaliteit van de röntgenfoto's en niet het minst in de aangelegde diagnostische criteria (omvang van de verhevenheden aan de tabula interna, dikte van het voorhoofdsbeen, en de combinatie van beiden).

Mijn eigen röntgenmateriaal werd kritisch nagezien door Prof. dr. Wm. Penn (Nijmegen), aan wie ik daarvoor nogmaals mijn grote erkentelijkheid betuig.

mag worden geconcludeerd dat de onderzochte klinische verschijnselen in beide groepen in nagenoeg dezelfde frequentie voorkomen. Alleen het verschil betreffende het aantal patiënten met een *cholesterolgehalte*  $> 7.3$  m.mol/L in het bloed springt in het oog, maar juist in dat onderzoekdeel doet zich de onnauwkeurigheid voor dat van groep I bij 10 en van groep II bij 4 patiënten geen cholesterolbepaling heeft plaats gevonden. Hoe ook de uitkomsten van de achterwege gebleven bepalingen zouden zijn geweest, er zou nimmer een opvallende samengang tussen craniële hyperostosis en een te hoge cholesterolspiegel uit geresulteerd zijn. Deze gevolgtrekking weerspreekt de wel eens geuite opvatting dat die correlatie voor de hand zou liggen uit hoofde van bij hyperostosispatiënten gestoorde metabolismen.

Halen we nu wederom de gevallen met h.f.i. uit groep I naar voren, dan blijken 26 van die 69 vrouwen (38%) *hypertensie* te hebben; dat is meer dan in groep II (27%), maar het verschil is niet significant ( $\chi^2 = 2.16$   $df = 1$ ). Deze grotere frequentie was al eerder opgemerkt. Carr (1936) was de eerste die aan dit samengaan van hypertensie met h.f.i. aandacht besteedde. Ettelijke andere onderzoekers bevestigden deze waarneming, o.a. Pedersen (1947), Appel (1949) en Mayer (1962).

Hoewel verschillende auteurs, o.a. Bartelheimer (1939), Calame (1941) en Mayer (1962)\* overtuigd zijn van een significant aanwezige *glucoseregulatiestoornis* bij patiënten met h.f.i., kon ik deze bevindingen in mijn onderzoek niet in die mate bevestigen. Tel ik de vrouwen met diabetes en praediabetes in de h.f.i.-subgroep bij elkaar, dan is de resultante 21 op 69 (d.i. 30%). Het verschil met diezelfde optelling in groep II (23%) is niet significant ( $\chi^2 = 1.17$   $df = 1$ ).

Wat betreft de *cholesterolwaarden* zij aan het hierboven geschrevene over dit gegeven nog toegevoegd, dat ook Mayer (1962) dienaangaande geen significant verschil kon vinden tussen patiënten met en zonder h.f.i.

Het was speciaal Stewart (1928) die een verband zag tussen het syndroom van Morgagni en *struma*. Uit mijn bevindingen in de subgroep h.f.i. blijkt dat slechts 2 van de 69 patiënten (3%) een nodeus struma vertonen. Deze uitkomst strookt met het merendeel van de desbetreffende gegevens in de literatuur, en is mede gezien de resultante in groep II (5%) in strijd met de opvatting van Stewart.

Naar *cataract* is bij de 'St. Anna'-patiënten niet systematisch gezocht, laat staan dat zulks met een spleetlamp gebeurd zou zijn. Des te frappanter lijkt het dat 4 van de 69 vrouwen met h.f.i. (6%) een duidelijk cataract bleken te hebben. Een verwaarloosbare uitkomst wellicht als men kijkt naar de 6% cataract in groep II. In

\* Mayer persisteerde op dit punt. Samen met een medewerker in Genève (Mayer en Martin, 1969) publiceerde hij een aanvullend poliklinisch onderzoek bij 200 diabeticae. Hoewel dit materiaal niet statistisch werd bewerkt, kwam men tot de conclusie dat het syndroom van Morgagni-Morel beschouwd kan worden als een uiting van latente diabetes.

dit kader mag echter worden meegedeeld dat de enige 2 gevallen van cataract in groep III voorkwamen bij vrouwen met h.f.i.

Een verdergaand gericht onderzoek zou nodig zijn om t.a.v. cataract in dit verband tot nauwkeuriger veronderstellingen te geraken. Bij mijn weten was het Morel (1930) die het eerst attendeerde op een frequent samengaan van cataract met h.f.i. Mayer (1962), die zeer secuur patholoog-anatomisch te werk ging, bevestigde dit en vond zelfs een hoog significante correlatie.

Aperte *gynaecologische aandoeningen* worden vermeld in de ziektegeschiedenissen van 7 patiënten in groep I en van 5 patiënten in groep II. Deze bevinding is niet de uitkomst van een grondig onderzoek naar menstruele aberraties en allerlei kleine afwijkingen op gynaecologisch gebied. Dit deel van het onderhavige vergelijkende onderzoek biedt derhalve geen aanknopingspunten voor de theorievorming aangaande de aetiologie van craniële hyperostosis, het trias van Morgagni of daarvan afgeleide syndromen. Toch mag niet onvermeld blijven dat in groep III alle 6 vrouwen met een gynaecologisch lijden (17%) een variant van hyperostosis te zien gaven (3 h.f.i., 2 n.f., 1 h.c.d.). Carr (1936) en Knies en Lefever (1941) rapporteerden hoge percentages menstruatiestoornissen bij hun patiënten met h.f.i., maar het waren vooral Franse auteurs die een verband legden tussen gonadale functiestoornissen en de frontale botwoekering. Een nadere uitwerking van deze problematiek is te vinden bij Scotto (1965) en bij Marlet (1975).

Van een relatie tussen *neurologische uitvalsverschijnselen* en craniële hyperostosis, speciaal h.f.i., is in de literatuur sinds Stewart (1928) bij herhaling gewag gemaakt. Eventuele visusafwijkingen en beperkingen van het gezichtsveld kunnen direct worden verklaard als gevolgen van het druk op de Nn. optici door extreme frontale botwoekeringen. Deze laatste bevinding kwam in groep I niet voor. Verder heb ik alleen het verschijnsel dementie als solitair fenomeen in deel C van dit onderzoek buiten beschouwing gelaten. Uit de vergelijking van groep I en groep II op het punt van neurologische uitvalsverschijnselen volgt, dat de uitkomst in de hyperostosisgroep (9%) kleiner is dan de score in groep II (14%). Ook overigens kan geen relatie met het al dan niet aanwezig zijn van craniële hyperostosis worden aangegeven omdat bij alle betrokken patiënten een oorzakelijk verband tussen de gevonden uitvalsverschijnselen en een bekende organische aandoening van het zenuwstelsel kon worden gelegd. Iets anders is dat organisch-cerebrale aandoeningen mogelijkwijs een hyperostosis in de hand werken, zoals door verschillende auteurs wordt aangenomen, bijv. bij bepaalde hersentumoren en bij dementia paralytica.

Een zelfde redenering als in de laatste alinea doet opgeld voor cerebrale aandoeningen welke met *epileptische openbaringen* gepaard gaan. In groep I worden 10 deelneemsters met epileptische verschijnselen gemeld, in groep II zijn het er slechts 3 (dit verschil is significant,  $\chi^2 = 4.25$   $p < .05$   $df = 1$ ) terwijl de enige 2 epileptische patiënten in groep III beiden met h.f.i. behept zijn. Deze uitkomsten geven voedsel aan de zo juist gerefereerde veronderstel-

ling en worden gestaafd door Sörgel en Heidrich (1963) die bij lijders aan epilepsie ongeveer twee keer zo vaak hyperostosis cranii waarnamen als bij gezonde proefpersonen.

Aan het einde van dit deel van de bespreking mag de uitkomst van een zeer recent onderzoek (Gegick c.s., 1973) niet onvermeld blijven. 807 vrouwelijke patiënten van een internistische afdeling en 303 gezonde vrouwen werden onderworpen aan een röntgenonderzoek van de schedel. In de patiëntenreeks werd 5,7% h.f.i. vastgesteld, in de reeks gezonde proefpersonen 6,2% h.f.i. Bij de uitgeselecteerde 65 vrouwen met h.f.i. werd in 53% van de gevallen een verhoogd alkalisch fosfatase aangetroffen (15 K.A.E. of méér). Bij de internistisch afwijkende vrouwen zonder h.f.i. werd deze verhoogde alk. fosfatase gevonden in 7,8% en bij de gezonde vrouwen zonder h.f.i. in 1,7%. Als vermoedelijke verklaring van het verhoogde alk. fosfatase bij 53% van de h.f.i. draagsters (statistisch significant) werd aangegeven, dat deze kon samenhangen met de actieve fase waarin de frontale botwoekering zou kunnen verkeren. Alle andere bevindingen op het gebied van exact meetbare waarden in het kader van een omvangrijke endocrinologische en metabole expertise (incl. glucosetolerantie) bleken in de vergeleken groepen niet significant te verschillen.

#### *ad D*

Vooraleer de getallen te laten spreken in de *psychopathologische bevindingen* bij vrouwelijke patiënten met en zonder craniële hyperostosis in een psychiatrisch centrum, is het goed nog even stil te staan bij de diagnostische rubricering in drie categorieën. De categorie 'overwegend depressieve beelden' is het best omlijnd. Bij alle hierin gerangschikte patiënten domineerden in het toestandsbeeld bij opname de hoofdkenmerken van het depressief syndroom. De gestelde diagnosen varieerden van endogene (al of niet geagiteerde) depressie en neurotische of hysterische depressie tot multiconditionele depressie, involutiedepressie en atypische depressie. De omlijning van de categorie 'overwegend organisch-cerebrale beelden' is al vager, is minstens zo zeer gegeven door bij verdergaand onderzoek gevonden cerebrale functiestoornissen als door verschijnselen behorend tot organisch-cerebrale psychosyndromen en daarmee samenhangende gedragsafwijkingen. Zo zijn in deze categorie ondergebracht vrouwen met postencefalitische psychopathiseringstoestanden, epileptische karakterdegeneratie en verschillende dementiën, maar ook patiënten met ernstige vormen van zwakzinnigheid en defecten na neurochirurgische ingrepen in het brein. De derde categorie is helemaal niet omgrensd want omvat alle 'andere beelden'. De driedeling stelt in wezen onvergelykbare groepen van patiënten naast elkaar. Deze groepen zijn tot categorieën gemaakt door de subjectieve gerichtheid van de onderzoeker die gepraeoccupeerd is door een mogelijke samenhang van depressieve en organisch-cerebraal gedetermineerde beelden enerzijds en craniële hyperostosis anderzijds. Hierbij zij overigens opgemerkt dat slechts een klein deel van de beschreven 300 patiënten door mij zelf is be-

keken en behandeld. De overgrote meerderheid van deze vrouwen is onderzocht door collegae die stellig niet bevooroordeeld waren t.a.v. alle met hyperostosis cranii geassocieerde symptomen van somatische en/of psychische aard. Zoals reeds bij enkele afzonderlijke klinische data werd vermeld, was van een op het titelonderwerp gericht systematisch onderzoek van de onderhavige patiënten dan ook geen sprake. Het was prettig om gebruik te kunnen maken van de gegevens verkregen uit het in 'St. Anna' gebruikelijke routineonderzoek (zoals schedelröntgen, verhouding gewichtslengte, bloeddruk, glucosetolerantietest, cholesterolgehalte) maar bevindingen op oogheelkundig en gynaecologisch gebied zijn van incidentele aard n.a.v. aperte klachten en verschijnselen. De conclusie diabetes of praediabetes werd veelal geschraagd door het oordeel van een aan het centrum verbonden internist. Voor de klinisch psychiatrische diagnoses ging ik grotendeels af op de omschrijvingen van collegae, wat een relativering van mijn subjectieve gerichtheid in deze impliceert.

Tegen deze achtergrond laten de gegevens uit deel D van deze studie wellicht toch enige interpretatie toe. Vergelijken we de uitkomsten van groep I met die van groep II (zie de tabellen 8 en 9), dan zien we dat de scoring van 'organisch-cerebrale beelden' in beide groepen gelijk is (32%). Het valt op dat de frequentie van 'depressieve beelden' in groep I (35%) belangrijk hoger ligt dan in groep II (22%). Dit verschil is significant ( $\chi^2 = 4.14$   $p < .05$   $df = 1$ ). Een zelfde vergelijking binnen groep III (zie tabel 10) spreekt nog sterker aan omdat de patiënten met hyperostosis daar in 62% van de gevallen tot de categorie 'depressieve beelden' behoren en de patiënten zonder hyperostosis slechts in 27%. (significant  $\chi^2 = 11.22$   $p < .01$   $df = 1$ )

Gegeven het feit dat de frequentie van 'organisch-cerebrale beelden' in groep I en groep II gelijk is en dat juist deze beelden in de oudere leeftijdssubgroepen overheersen (zie tabel 9), is het vanuit statistische overwegingen niet onverantwoord om de patiënten uit groep III – die globaal gesproken jonger is (lagere gemiddelde leeftijd) dan groep I en II – toe te voegen aan beide andere groepen: de 34 vrouwen met craniële hyperostosis aan groep I en de 66 vrouwen zonder hyperostosis aan groep II. In tabel 11 wordt deze toevoeging tot uitdrukking gebracht.

De categorie 'organisch-cerebrale beelden' is in deze laatste vergelijking van patiënten met en zonder hyperostosis nagenoeg gelijk vertegenwoordigd. De frequentie 'depressieve beelden' is bij patiënten met hyperostosis van de schedelbeenderen duidelijk hoger (42%) dan bij patiënten zonder hyperostosis (24%). (significant  $\chi^2 = 10.66$   $p < .01$   $df = 1$ ) Bij al deze percentage-berekeningen blijken er zeer geringe verschillen te zijn voor wat betreft het geheel van hyperostosisvarianten en h.f.i. afzonderlijk, verschillen die niet significant zijn ( $\chi^2 = .01$   $df = 1$ ). De conclusie mag dan ook zijn, dat er een positieve correlatie is tussen craniële hyperostosis en depressieve beelden bij vrouwelijke verpleegden in een psychiatrisch centrum.\*



Tabel II:

Samenvoeging van de psychopathologische bevindingen in de groepen I, II en III

	patiënten met craniële hyperostosis			totalen
	depressieve b.	org.-cerebr. b.	andere b.	
groep I	35	32	33	100
uit groep III	21	7	6	34
	56 (42%)	39 (29%)	39 (29%)	134 (100%)
patiënten zonder craniële hyperostosis				
groep II	22	32	46	100
uit groep III	18	18	30	66
	40 (24%)	50 (30%)	76 (46%)	166 (100%)

### Epicritische beschouwingen

Als Prick (1970) in deel IV van het Nederlands Handboek der Psychiatrie het onderwerp hyperostosis frontalis interna aansnijdt, stelt hij dat functioneel-structurele afwijkingen van de hersenen niet zelden intiem samenhangen met afwijkingen van de schedel, benevens met cranio-cervicale anomalieën: 'Als regel is er geen sprake van twee parallelfenomenen, doch van een pathologische twee-eenheid'. Op deze plaats mag worden opgemerkt dat bovengenoemde stelling via eigen onderzoek (Jaspar en Marlet, 1974) embryologisch kon worden onderbouwd, met dien verstande dat de dura zich blijkt te differentiëren uit de matrix waaruit ook het bot ontstaat. Prick sluit zich aan bij de mening dat hyperostosis frontalis interna (door hem vereenzelvigd met de ziekte van Morgagni-Morel) gepaard gaat met ernstige psychische en endocriene afwijkingen, al dan niet in combinatie met obesitas en hypertensie, en is – gezien zijn vertrekpunt – geneigd aan te nemen dat patiënten met h.f.i. aan alle organische psychosyndromen kunnen lijden welke in de klinische psychiatrie zijn beschreven. Hij noemt: dementieel proces, organisch-cerebrale depressie, hypochondrie, neurasthenisch beeld, (psychastheen) dwangneurotiform symptomencomplex, syndroom van akinetisch-mutisme, andere vorm van stupor, op schizofrenie gelijkende toestanden, organische psychopathiseringsstoelstanden, hysteriforme gedragspatronen en epileptische manifestaties.

Het uitgangspunt van mijn studie bestond uit klinische indrukken opgedaan bij patiënten in een *psychiatrisch centrum*. (Ik distancieerde me van eventuele psychopathologische bevindingen bij hyperostosis-draagsters in het 1e en 2e echelon van de hulpverlening c.q. de huisartsenpraktijk en het bereik van de vrij praktizerende

\* Gaarne dank ik mijn medewerker drs. J. B. Gieles voor de statistische bewerking van het materiaal.

zenuwarts.) Voor het nadere onderzoek in de populatie van dat psychiatrisch centrum koos ik een diagnostische driedeling op grond van niet al te scherpe criteria, mij ervan bewust dat in de categorie 'overwegend depressieve beelden' bepaalde organische psychosyndromen in de zin van Prick konden schuilgaan, voorts dat in de categorie 'overwegend organisch-cerebrale beelden' de craniële hyperostosis cum annexis als factor kon meespelen naast bekende andere orgaanpathologische condities, en tenslotte dat in de groep 'andere beelden' de hyperostosisconditie eveneens 'een duit in het zakje' zou kunnen doen. Nochtans meen ik dat de uitkomst van dit onderzoek in 'St. Anna' de gedachtengang van Prick adstrueert en dat voor de gevonden relatief frequente samenhang van h.f.i. met depressieve beelden in dat licht ook een *samenhang* is aan te geven. Prick veronderstelt namelijk dat het op wat latere leeftijd optreden van de klinische verschijnselen (2e, 3e of 4e decade) in eerste instantie het gevolg is van de pas dan manifest wordende haemodynamische stoornissen in de frontale en praefrontale delen van het brein die op hun beurt het gevolg zijn van pathologische veranderingen van de aangrenzende skeletdelen. Belangwekkend voor de theorievorming is wat hij verdergaand schrijft: 'De vanuit het pathologische centrale zenuwstelsel opgeroepen labiliteit van de existentie zal als regel voor het manifest worden van de pathologie een complement behoeven vanuit het milieu waarin de patiënt verkeert. Naarmate het labiel existierend subject vanuit zijn leefwereld onder invloed van ondeugdelijke sociaal-psychologische c.q. biologische factoren gedé-animeerd wordt en op grond van subjectieve betekenisverlening zijn verbondenheid met die leefwereld als emotioneel stresserend ervaart, des te groter is de kans op toenemende desintegratie van zijn persoonlijkheid en accentuering van zijn gereduceerd bestaan. Een andere factor binnen de constellatie van psychische stoornissen oproepende invloeden is een breuk in het evenwicht tussen liquor-aanmaak, liquor-circulatie en liquor-terugresorptie, die bij betreffende skeletafwijkingen kan optreden'.

Het gewicht dat aan het door Prick bedoelde 'complement vanuit het milieu' (de invloed van ondeugdelijke sociaal-psychologische factoren) moet worden toegekend, acht ik persoonlijk zeer groot, in het merendeel der gevallen die in een psychiatrisch centrum worden opgenomen zelfs doorslaggevend. Men bedenke hierbij dat er geen redenen zijn om te veronderstellen dat zich gezond voelende vrouwen in een opvallend kleinere frequentie craniële hyperostosis meedragen dan vrouwelijke patiënten in een psychiatrisch centrum. Steinbach (1966) vergeleek een groep neuropsychiatrische patiënten met een groep traumatologische patiënten en vond geen noemenswaardig verschil in het voorkomen van h.f.i. Hawkins en Martin (1965) kwamen tot de uitkomst dat het gemiddelde voorkomen van h.f.i. bij de vrouwelijke bevolking van een psychiatrisch ziekenhuis slechts 3,1% hoger lag dan bij vrouwelijke patiënten in een algemeen ziekenhuis. Zelf vergeleek ik mijn groep III met een even grote en qua leeftijd op dezelfde manier opgebouwde groep vrou-

wen uit de internistische afdeling van een algemeen ziekenhuis en een dito groep gezonde vrouwelijke proefpersonen. Het resultaat was dat craniële hyperostosis (alle varianten) werd gevonden in resp. 34, 27 en 36%, terwijl h.f.i. werd aangetroffen in resp. 28, 10 en 24%. M.a.w.: het percentage craniële hyperostosis lag bij gezonde vrouwen 2% hoger dan bij vrouwelijke psychiatrische patiënten en h.f.i. in dezelfde vergelijking 4% lager. (De omstandigheid dat in die door mij vergeleken honderdtallen van vrouwen het percentage hyperostosis belangrijk groter is dan door andere auteurs wordt opgegeven, is enerzijds te verklaren door de leeftijdsopbouw van die groepen – waarvoor groep III model stond – en anderzijds door de door mij gebezigde röntgendiagnostische criteria.) Uit casuïstische publikaties wordt de indruk verkregen dat de graad van h.f.i. bij vrouwen verband houdt met het al of niet aanwezig zijn van symptomen zoals obesitas, viriele beharing, hypertensie, stoornissen in de glucosetolerantie en wat dies meer zij. In deze samengang is echter, gelet op mijn ervaring met ruim 400 gevallen van craniële hyperostosis, geen correlatie te bespeuren. Het is zelfs niet zo dat een ernstige graad van h.f.i. vaker deel uitmaakt van het trias van Morgagni dan een lichte graad van deze hyperostosisvariant. Het verband tussen de graad van de frontale botwoekering en de ernst van het persoonlijkheidsverval lijkt gezien incidentele mededelingen in de literatuur en enkele eigen observaties wel voorhanden, maar is vooralsnog niet bewezen bij gebrek aan controle-reeksen.

### **Samenvatting**

Na een summiere oriëntering in de problematiek aangaande craniële hyperostosis en speciaal hyperostosis frontalis interna – de meest voorkomende hyperostosis variant bij vrouwen – wordt een klinisch onderzoek weergegeven bij 3 groepen vrouwelijke verpleegden in een psychiatrisch centrum. Elke groep omvat 100 personen. Groep I bestaat uit patiënten bij wie enige variant van craniële hyperostosis (volgens Moore) was vastgesteld. Groep II is samengesteld uit patiënten zonder craniële hyperostosis (zelfde aantal vrouwen per leeftijdssubgroep als in groep I). Groep III is een aselechte opnamegroep waarin 34% craniële hyperostosis werd gevonden. Bij het vergelijkend onderzoek werd gelet op obesitas, viriele beharing, hypertensie, glucosestofwisseling, cholesterolgehalte in het bloed, struma, cataract, gynaecologische aandoeningen, neurologische uitvalsverschijnselen, epileptische openbaringen en psychopathologische bevindingen. Voor wat betreft de psychopathologie werd een facultatieve verdeling in 3 categorieën gekozen: overwegend depressieve beelden, overwegend organisch-cerebrale beelden en 'andere' beelden. De uitkomsten van dit onderzoek, waaronder een positieve correlatie tussen hyperostosis frontalis interna en depressieve beelden, worden nader besproken in het licht van bestaande theorieën betreffende de samenhang van craniële hyperostosis en daarmee geassocieerde symptomen.

## Literatuurlijst

- Appel, W. (1949), Über die klinische bedeutung des Stewart-Morel-Morgagnischen Syndroms. *Dtsch. Arch. Klin. Welt* 194, 353-366
- Bartelheimer, H. (1939), Hyperostosis frontalis interna. Ein endokrines Symptom. *Zentralbl. Innere Medizin* 60, 769-783
- Bartelheimer, H. (1939), Hyperostosis frontalis interna und hypophysären Diabetes. *Wien med. Wochenschr.* 89, 341-343
- Beadles, C. F. (1898), The cranium of the Insane; Osteïtes deformans and acromegaly. *Edinburgh Med. J. new series* 3, 263-272, 388-401, 501-508
- Bleuler, M. (1954), *Endokrinologische Psychiatrie*. Georg Thieme Verlag, Stuttgart, p. 326
- Calame, A. (1951), *Le Syndrome de Morgagni-Morel*. Masson & Cie, Paris
- Carr, A. D. (1936), Neuropsychiatric syndromes associated with hyperostosis frontalis interna. *Arch. Neurol. and Psychiat.* 35, 981-985
- Gegick, C. G., T. S. Danowskj, R. C. Khurana, C. Vidalon, S. Nolan, T. Stephan, S. Chae en L. Wingard (1973), Hyperostosis Frontalis Interna and Hyperphosphatasemia. *Am. Int. Med.* 79, 71-75
- Harding, Floyd E. (1949), Endocrinopathies associated with Hyperostosis Frontalis Interna. *Amer. J. Med.* 6, 329-335
- Hawkins, T. D. en L. Martin (1965), Indicence of hyperostosis frontalis in patients at a general hospital and at a mental hospital. *J. Neurol. Neurosurg. Psychiatr.* 28, 171-174
- Henschen, F. (1937), *Morgagni's Syndrom: Hyperostosis frontalis interna, virilismus, obesitas*. Verlag Gustav Fischer, Jena
- Henschen, F. (1944), Ueber die klinische Bedeutung von Morgagni's Syndrom. *Acta path. et microbiol. Scand. suppl.* 53, 617-642
- Jaspar, H. H. J. en J. J. C. Marlet (1974), Over beenvorming in de dura mater bij dieren en mensen. *Arts en Wereld* 3, 5-19
- Knies, P. T. en H. E. Lefever (1941), Metabolic Craniopathy. Hyperostosis frontalis interna. *Am. Int. Med.* 14, 1858-1892
- Marlet, J. J. C. (1972), Familiair voorkomen van craniële hyperostosis. *N.T.v.G.* 52, 2333-2337
- Marlet, J. J. C. (1974), Development of Cranial Hyperostosis. *Radiol. clin. biol.* 43, 473-482
- Marlet, J. J. C. (1975), On the Relation between Cranial Hyperostosis and Endocrinic Factors. *Medikon* 5, 23-31
- Mayer, R. (1962), Hyperostose frontale interne (Analyse statistique anatomopathologique et clinique d'une série de 100 cas). *Acta neurovegetativa* bd. XXIII 265-299 en 399-413
- Mayer, R. en E. Martin (1969), Le syndrome de Morgagni-Morel (un état de diabète latent). *Journ. Ann. Diabet. Hotel Dieu* 10, 77-94
- Meyer, P. L. (1956), *Hyperostosis frontalis interna en het syndroom van Morgagni*. Dissertatie Amsterdam
- Michaux, L., J. le Beau, J. F. Foncin, C. Koupernik, R. Billet, G. Colomb en St. Pannier (1963), État démentiel au cours d'une syndrome de Morgagni-Stewart-Morel, constation anatomique d'une sclérose cérébrale de Schilder. *La Presse médicale* 71, 519-522
- Moore, S. (1935), Hyperostosis frontalis interna; a preliminary study. *Surg. Gynec. & Obst.* 61, 345-362
- Moore, S. (1936), Calvarial hyperostosis and the accompanying symptom complex. *Arch. Neurol. and Psychiat.* 35, 975-981
- Moore, S. (1936), Metabolic Craniopathy. *Am. J. Roentgenol.* 35, 29-30
- Moore, S. (1955), *Hyperostosis Cranii*. Charles C. Thomas Publ., Springfield, III

*Klinische aspecten van vrouwen met craniële hyperostosis*

- Morel, F. (1930), *L'hyperostose frontale interne. Syndrome de l'hyperostose frontale interne avec adipose et troubles cérébraux*. Paris
- Morgagni, G. (1765) *De Sedibus et Causis Morborum*. Lib. II, Epist. XXVII, Padova
- Pedersen, J. (1947). Hyperostosis cranialis interna. The Morgagni and Stewart-Morel Syndromes (Examination of Females suffering from Diabetes Mellitus and other Endocrine Disorders as well as Female Epileptics). *Acta med. Scand.* Vol. CXXVIII, Fasc. I, 71-102
- Perou, M. L. (1964), *Cranial Hyperostosis (Hyperostosis Cranii or H.C.)*. Charles C. Thomas Publ. Springfield, Ill
- Prick, J. J. G. (1970). 'De dementieën' in *Nederlands handboek der psychiatrie* (o.l.v. Prof. Dr. J. J. G. Prick en Dr H G van der Waals), deel 4. Van Loghum Slaterus, Deventer, p. 436 e.v.
- Rümke, H. C. (1960), *Psychiatrie II (De psychosen)*. Uitg. Scheltema & Holkema, Amsterdam, p. 119
- Schiff, P. en J. Trelles (1931), Syndrome de Stewart-Morel d'origine traumatique. *Encéphale* 26, 768-779
- Scotto, J.-Cl. (1965), *L'hyperostose frontale interne*. L'Expansion scientifique française édit.
- Smith, S. en R. E. Hemphill (1956), Hyperostosis frontalis interna. *J. Neurol. Neurosurg. Psychiatr.* 19, 42-45
- Sörgel, H. J. en R. Heidrich (1963), Über die Hyperostosen der Kalotte bei Epileptikern. *Psychiatr. Neurolog. et med. Psychol.* 15, 185
- Steinbach, M. (1966), Klinische und statistische Untersuchungen zur Frage der Hyperostosis frontalis interna. *Schweiz. Arch. J. Neurol. Neurochir. u. Psychiatrie*. bd. 97, 2, 67-82
- Stewart, R. M. (1928), Localised cranial hyperostosis in the insane. *J. Neurol. and Psychopath.* (Brit.) 8, 321-331