臨 床

帯状疱疹ウイルスによる下位脳神経障害の3例

石川 敏夫・戸島 均

Three Cases of Lower Cranial Nerve Involvement with Herpes Zoster

Toshio Ishikawa and Hitoshi Tojima

(Hitachi General Hospital)

We present three cases of lower cranial nerve involvement with herpes zoster. All cases complained of dysphagia owing to X cranial nerve involvement and presented mucosal symptoms of the larynx on one side. In one case, no vesicles were noted in the ear and there was no facial palsy. The others presented VII and VIII cranial nerve involvement in addition to lower cranial nerve involvement.

Due to the lower cranial nerve involvement, varicella-zoster infection should be considered as a possible diagnosis.

Key words : lower cranial nerve involvement, dysphagia, varicella-zoster infection

はじめに

帯状疱疹ウイルスに起因した耳介帯状疱疹は、脳神経障害を併発することが知られている。障害される脳神経は第VIIおよび第VIII脳神経が多く、この場合を特にハント症候群と呼ぶ。また第VIIおよび第VIII脳神経以外の脳神経症状を呈することも報告されている。

今回われわれは、帯状疱疹ウイルス感染により下位脳神経障害を起こし、嚥下障害を呈した3例を経験したので若干の考察とともに報告する。

症 例

症例1: 73歳, 男性, []

主訴: 嚥下困難。

既往歴: 変形性頸椎症, 白内障。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 2000年9月14日, 嚥下困難, 誤嚥が出現した。咽頭痛は嚥下時に軽度を感じる程度であった。水も飲めない状態が続いたため, 9月18日近医を受診し, 翌

19日, 当科を紹介され受診した。

初診時所見: 右側の喉頭蓋喉頭面から仮声帯, 声帯, 披裂部に小白苔と発赤腫脹を認め, 右梨状陥凹への唾液貯留, 右声帯可動性の低下を認めた(図1)。咽頭絞扼反射の低下, 軟口蓋麻痺はなかった。耳介および外耳道に明らかな異常を認めず, 顔面神経麻痺, 蝸牛症状, 前庭症状もなく, その他の神経学的異常を認めなかった。髄膜刺激症状も認めなかった。

検査所見: 血液検査では白血球数 $7900/\text{mm}^3$, CRP 0.94 mg/dl と炎症の程度は軽度であった。酵素免疫法 (enzyme immunoassay : EIA) による血清ウイルス抗体価検査では, 9月19日の時点では帯状疱疹ウイルス (varicella-zoster virus : VZV) は IgM 0.09 (基準値 0.80 未満), IgG 17.8 (基準値 2.0 未満) であり, 単純疱疹ウイルス (herpes-simplex virus : HSV) は IgM 0.19 (基準値 0.80 未満), IgG 2.0 未満 (基準値 2.0 未満) であった。聴力検査は両耳とも高音障害型の感音難聴を示したが, 左右差はなかった。アブミ骨筋反射は正常範囲内で

図1 初診時所見

右側の喉頭蓋喉頭面から仮声帯、声帯、披裂部に小白苔(矢印)と発赤腫脹を認めた。

あった。頭部MRI検査では小脳・脳幹および頸静脈孔付近に異常を認めず、ENGでは小脳・脳幹異常を示す所見は認めなかった。ビデオ嚥下造影では食道入口部の開大不全、右梨状陥凹へのバリウム貯留、喉頭下降期型誤嚥を認めた(図2a)。輪状咽頭筋の弛緩不全が嚥下障害の原因と考えられた。

臨床経過: 急性の発症であり、右側に限局した喉頭粘膜病変を伴うことより、VZV感染による第X脳神経障害と考え、9月19日より入院加療した。1日1500mlの輸液とともに、アシクロビル250mgを1日3回、7日間点滴静注した。24日には喉頭粘膜病変が消失し、28日には咽頭痛も消失したが嚥下障害は変わらなかった。ビデオ嚥下造影では食道入口部の開大不全と右梨状陥凹へのバリウム貯留は残るものの誤嚥を認めないため、嚥下訓練を開始した。直接訓練としてゼラチンゼリーを時間をかけて摂食させたところ、嚥下障害の改善が認められ、10月4日には3分粥食、6日には7分粥食が食べられるようになったため、10日、退院した。また10月5日の血清VZV抗体価(EIA)はIgM 0.07、IgG 128.0であり、IgGの有意な上昇が認められた。10月18日の外来再診時には嚥下障害の自覚症状は消失しており、11月9日に行ったビデオ嚥下造影では初診時に認められた異常所見は消失していた(図2b)。

症例2: 76歳、男性、

主訴: 左耳痛、咽頭痛、嚥下困難、嗄声。

既往歴: 黄疸。

家族歴: 特記すべきことなし。

1999年11月11日、咽頭痛、嚥下困難、嗄声が出現した。13日には左耳痛も出現したため、17日近医を受診し、翌18日当科を紹介され受診した。

初診時所見: 左耳介および外耳道に発赤腫脹および水泡を認めた。また左側の喉頭蓋喉頭面と披裂部に小白苔と発赤腫脹を認め、左声帯は副正中位で固定し、左梨状陥凹への唾液貯留、左軟口蓋麻痺を認めた。顔面神経麻痺、蝸牛症状、前庭症状はなく、その他の神経学的異常を認めなかった。髄膜刺激症状も認めなかった。

検査所見: 血液検査では白血球数 $6000/\text{mm}^3$ 、CRP 0.24 mg/dl であった。髄液検査では髄液は無色で混濁なく、細胞数 $158/\text{mm}^3$ (単核球: 多核球 = 12:1)、蛋白 57 mg/dl 、糖 62 mg/dl 、クロール 128 mg/dl であった。ウイルス抗体価検査(EIA)では、11月18日の時点では、血清VZVはIgM 0.09、IgG 128.0であり、血清HSVはIgM 0.31、IgG 2.0未満、また髄液VZVはIgM 0.10、IgG 6.77であった。聴力検査では両耳とも高音漸傾型の感音難聴を認めるものの左右差を認めず、アブミ骨筋反射では両側の刺激で左側反射が消失していた。また頭部MRI検査では小脳・脳幹および頸静脈孔付近に異常を認めず、ENGでは小脳・脳幹異常を示す所見は認めなかった。ビデオ嚥下造影では食道入口部の開大不全、左梨状陥凹へのバリウム貯留を認めたが、誤嚥は認めなかった。

臨床経過: 左側に限局した喉頭粘膜病変および左耳介・外耳道病変、神経症状、血清および髄液ウイルス抗体価検査などから、VZV感染による一連の症状と考え、11月18日より入院加療した。1日1500mlの輸液とともに、アシクロビル250mgを1日3回、7日間点滴静注した。ところが、11月22日になって聴力検査上、左耳は右耳に比べて10~15dBの感音難聴を呈し、また左顔面表情筋の麻痺、左鼓索神経領域の味覚低下が出現した。ENoG最低値は35%であった。また25日には左胸鎖乳突筋および僧帽筋の麻痺が出現した。一方、11月22日には喉頭粘膜病変は消失し、入院時に誤嚥していた状況も24日には改善し、12月3日に退院した。その後、外来にて経過を観察したところ、12月8日には感音難聴は左右差のないところまで回復し、2000年1月5日には味覚障害が回復し、顔面表情筋麻痺もHouse-brackmann grade 1まで回復した。4月12日には軟口蓋麻痺および胸鎖乳突筋・僧帽筋麻痺も回復した。しかし2001年4月11日現

図2 ビデオ嚥下造影検査 (a: 初診時, b: 11月9日)

初診時, 食道入口部の開大不全 (矢印), 右梨状陥凹へのバリウム貯留 (矢頭), 喉頭下降期型誤嚥を認めた. 11月9日には異常所見は認められなかった.

在, 反回神経麻痺は回復していない.

症例3: 52歳, 女性, [REDACTED]

主訴: 嚥下困難, 咽頭痛, 右耳痛.

既往歴: 特記すべきことなし.

家族歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 2001年1月10日, 咽頭痛が出現したが, 風邪かと思ひ様子をみていた. 12日になり咽頭痛が増悪して食事ができなくなり, 右耳痛も出現したため, 翌13日, 近医を受診した. 近医初診時は, 右外耳道下壁の軽度発赤のみで咽喉頭には明らかな異常を認めなかったため, 抗生剤と鎮痛剤が処方された. 15日になって右耳介・外耳道・鼓膜に水疱が出現し, 鎮痛剤を内服しているためか, 咽頭痛は軽度であるにもかかわらず嚥下困難を訴えたため, ヘルペス感染症も否定できないとのことで, 翌16日当科を紹介され受診した.

初診時所見: 右耳介・外耳道・鼓膜に発赤腫脹および水疱を認めた. また右側の喉頭蓋喉頭面と披裂部に小白苔と発赤腫脹を認め, 右梨状陥凹への唾液貯留, 右声帯

の可動性低下, 右軟口蓋麻痺を認めた. 顔面神経麻痺, 蝸牛症状, 前庭症状はなく, その他の神経学的異常を認めなかった. 髄膜刺激症状も認めなかった.

検査所見: 血液検査では白血球数 $7500/\text{mm}^3$, CRP 0.12 mg/dl と炎症反応は認められなかった. 血清ウイルス抗体価検査 (EIA) では, 1月16日の時点では, VZV は IgM 0.22 , IgG 60.4 であり, HSV は IgM 0.42 , IgG 6.9 であった. 聴力検査では左右差を認めず, アブミ骨筋反射では両側の刺激で右側反射が消失していた. 頭部MRI検査では脳幹, 小脳および頸静脈孔付近に異常を認めず, ENGでは小脳・脳幹異常を示す所見は認めなかった. ビデオ嚥下造影では食道入口部の開大不全, 右梨状陥凹へのバリウム貯留を認めたが, 誤嚥は認めなかった.

臨床経過: 右側に限局した喉頭粘膜病変および右耳介・外耳道・鼓膜病変, 神経症状, 血清ウイルス抗体価検査などから, VZV感染による一連の症状と考え, 1月16日より入院加療した. 1日 1500 ml の輸液とともに, アシクロビル 250 mg を1日3回, 7日間点滴静注した. とこ

表1 症例のまとめ

症例	1	2	3
年齢	73	76	52
性別	男	男	女
脳神経障害	X	VII VIII IX X XI	VII VIII IX X
ヘルペス疹の出現部位	喉頭	喉頭 耳介 外耳道	喉頭 耳介 外耳道 鼓膜
ヘルペス疹の出現期間			
喉頭	6日間	5日間	4日間
耳介・外耳道	—	16日間	15日間
嚥下障害の持続	4週間	2週間	2週間
血清 VZV IgM (EIA)	9/19 10/5 0.09 0.07	11/18 12/24 3/15 0.09 0.04 0.08	1/16 2/15 0.22 0.48
血清 VZV IgG (EIA)	17.8 128.0	128.0 120.0 98.6	60.4 128.0
髄液 VZV IgM (EIA)	—	11/19 0.10	—
髄液 VZV IgG (EIA)	—	6.77	—
髄液検査	—	単核球優位な細胞数の増加	—
頭部 MRI 検査	小脳・脳幹・頸静脈孔 付近に異常なし	小脳・脳幹・頸静脈孔 付近に異常なし	小脳・脳幹・頸静脈孔 付近に異常なし
ENG	小脳・脳幹異常なし	小脳・脳幹異常なし	小脳・脳幹異常なし
ビデオ嚥下造影検査	食道入口部開大不全 右梨状陥凹への貯留 喉頭下降期型誤嚥	食道入口部開大不全 左梨状陥凹への貯留 誤嚥なし	食道入口部開大不全 右梨状陥凹への貯留 誤嚥なし
治療	アシクロビル点滴 750 mg/日 7日間	アシクロビル点滴 750 mg/日 7日間	アシクロビル点滴 750 mg/日 7日間
予後	脳神経障害消失	反回神経麻痺のみ残存	脳神経障害消失

ろが、1月18日になって右軽度感音難聴、右顔面表情筋の麻痺、右鼓索神経領域の味覚低下が出現した。ENoG最低値は45%であった。また19日には眩暈が出現し、左向き水平性回旋性混合性眼振を認めた。一方、喉頭粘膜病変は19日には消失し、23日には反回神経麻痺および軟口蓋麻痺が回復し、24日には嚥下障害は常食が食べられるまで回復、眩暈もほぼ消失したため退院した。その後、外来にて経過を観察したところ、2月13日には味覚障害が回復し、28日には感音難聴が回復、顔面表情筋麻痺も House-brackmann grade 1 まで回復した。

表1に各症例のまとめを示す。

考 察

带状疱疹ウイルス (VZV) に起因した耳介帯状疱疹は、脳神経障害を併発することが知られている。障害される

脳神経は第VIIおよび第VIII脳神経が多く、この場合を特にハント症候群と呼ぶ。また第VIIおよび第VIII脳神経以外の脳神経症状を呈することも報告されている^{1)~3)}。しかし症例1のように耳介帯状疱疹を伴わず、顔面神経麻痺を合併しないで迷走神経麻痺を生じ、嚥下障害を呈した報告は少ない⁴⁾。また症例2, 3は耳介帯状疱疹を認めるものの下位脳神経麻痺が先行し、第VIIおよび第VIII脳神経障害が遅れて発症したことは興味深い⁵⁾⁶⁾。

VZV感染により嚥下障害を起こした症例は、前田ら⁷⁾によると1992年までに本邦で9例、諸外国で14例と少ないが、そのほとんどが1~3週で軽快し経口摂食可能となったとのことである。本症例では自覚的な嚥下障害の消失までに症例1は約4週間、症例2, 3は約2週間を要した。一般的にVZV感染による嚥下障害は予後良好と考えられるが、前田ら⁷⁾が経験した症例では高度な嚥下障

害が長期にわたり持続しており、一方、嚥下性肺炎を併発した症例もあり⁸⁾⁹⁾、さらにそのうち1例は死の転帰をとったと報告されており、十分な対応が必要と考えられた。

ビデオ嚥下造影は嚥下運動の口腔期、咽頭期、食道期のすべてを観察でき、嚥下障害の原因、部位、程度を把握できる最も診断価値の高い検査である¹⁰⁾。ビデオ嚥下造影の結果、すべての症例において輪状咽頭筋の弛緩不全により、下咽頭梨状陥凹に食塊が貯留してしまうことが嚥下障害の原因であることがわかった。また症例1は喉頭下降期にその食塊が喉頭に流入して誤嚥を生じることがわかった。さらに症例1は嚥下不能の状態が2週間続いたが、その時点のビデオ嚥下造影による再評価では改善が認められており、嚥下可能と判断できた。誤嚥して呼吸もできないような状態を経験しており、摂食に対して消極的になっていたため、ビデオ嚥下造影の結果を患者にもみせて嚥下障害が明らかに改善していることを説明した。その上で最も嚥下しやすいといわれているゼラチンゼリーを少量ずつ、可能な範囲で食べてもらったところ、開始数日はなかなかうまくいかなかったが、誤嚥しないで食べられることがわかると一気に改善が認められた。ビデオ嚥下造影は嚥下障害の評価および嚥下訓練を開始する上での患者への説明にも非常に有効であり、その後の嚥下訓練は嚥下障害のリハビリに有効であった。

VZV 感染に伴う多発脳神経障害発症の機序としては、脳神経の神経連鎖を介した播種、限局性脳炎などが考えられている。前者はVZVが初感染後、三叉神経節、顔面神経膝神経節、舌咽神経節、迷走神経節などの一つ、あるいは複数の潜伏感染していたものが、再活性化された際、脳神経の神経連鎖を介して多発性脳神経障害を生じるという考えである¹¹⁾。また後者はハント症候群で、髄液検査により高率にリンパ球を主体とした細胞増加を認めること¹²⁾や、髄液中にVZVの抗体が認められたり、VZVそのものが認められたこと¹³⁾などから支持される。本症例では症例2しか髄液検査が行われなかったが、単核球有位な細胞数の増加、VZV抗体価の上昇を認め、髄膜刺激症状はないものの、限局性脳炎ともとれる所見であった。

VZV感染では、下位脳神経麻痺が先行し第VIIおよび第VIII脳神経障害が遅れて発現する例もあり⁵⁾⁶⁾、初診時に障害が確認された以外の脳神経の経時的観察が必要と考

える。症例1は第X脳神経麻痺のみ発現した。症例2は第IX・X脳神経麻痺が出現してから数日後、第VII・VIII脳神経麻痺が出現しさらにその数日後に第XI脳神経麻痺が出現した。症例3もやはり第IX・X脳神経麻痺が出現してから数日後、第VII・VIII脳神経麻痺が出現した。しかしこれらはすべて当科初診時に一側に限局した喉頭粘膜病変を認め、症例2,3は耳介および外耳道に皮膚病変を認め、VZVの関与が考えられた。ただし咽喉頭などの粘膜病変は見逃されやすい。この理由を室井ら⁴⁾は、口の中のヘルペスにおいて発疹が水泡状を呈している時期がきわめて短期間で、すぐに消えて黄白色の斑点に変わり、初めは分離しているが次第に融合して一般に知られているヘルペス状を呈しなくなるからであると説明している。本症例は初診時、いずれも一側性の喉頭粘膜の発赤腫脹および小白苔を示すのみで、それらも4~6日間で消失した。喉頭粘膜病変については注意深い観察を怠ると見逃す可能性も大きいと考えられた。また症例1では喉頭粘膜病変を見逃した場合、迷走神経麻痺の原因がわからなかった可能性もあり、下位脳神経障害を示す疾患の鑑別にVZVの関与も考慮すべきと思われた。

まとめ

1. VZV 感染による下位脳神経障害により嚥下障害を呈した3例を報告した。
2. VZV 感染では下位脳神経障害のみが発現するものや、下位脳神経障害が発現したのちに第VIIおよび第VIII脳神経障害が発現するものもあり、初診時に発現した以外の脳神経の経時的観察が必要と考えられた。
3. 下位脳神経障害を呈する疾患の鑑別にVZV感染も考慮すべきと考えられた。

参考文献

- 1) 吉岡 亮, 北川義展, 川田純也, 他: 帯状疱疹ウイルスによる一側性第VIII, IX, X脳神経障害. 臨床神経 30: 413~415, 1990.
- 2) 生井明浩, 池田 稔, 伊藤 勇, 他: 帯状疱疹ウイルスによる一側性第IX, X, XI脳神経障害例. 耳鼻臨床 補 78: 165~170, 1995.
- 3) 舟川 格, 寺尾 章, 古賀道明: 一側性第IX, X, XI脳神経障害, 上部頸神経障害を呈した zoster sine herpete の1例. 臨床神経 39: 958~960, 1999.
- 4) 室井昌彦, 亀井民雄, 安岡義人, 他: 頭部帯状疱疹感染症の7例—舌咽・迷走神経障害を中心に—. 日気食会報 38:

- 434 ~ 440, 1987.
- 5) 永野隆治, 折田洋造, 沖田容一, 他 : 嚥下障害を主訴とした Hunt 症候群の 1 例. 耳鼻臨床 74 : 1543 ~ 1549, 1981.
- 6) 森田一郎, 井上鐵三, 田部哲也, 他 : 多発性脳神経障害を呈した Hunt 症候群の 1 例. 耳喉 57 : 297 ~ 302, 1985.
- 7) 前田淳子, 塩尻俊明, 土屋邦秋, 他 : 高度の嚥下障害を主徴とした帯状疱疹ウイルスによる多発性脳神経麻痺の 1 例. 臨床神経 32 : 524 ~ 526, 1992.
- 8) 佐藤勝重, 中村清一, 小関 隆, 他 : 多発性脳神経麻痺と急性呼吸不全を合併した Rumsey Hunt 症候群の 1 例. 日胸疾会誌 29 : 1037 ~ 1040, 1991.
- 9) 荻野 敏, 阿部能之, 北奥繁夫, 他 : 多発性脳神経障害を呈した Hunt 症候群の一例—免疫・ウイルス学的検討—. 耳鼻臨床 80 : 585 ~ 590, 1987.
- 10) 丘村 熙, 森 敏裕, 稲木匠子 : 嚥下障害の診断. 耳喉頭頸 62 : 383 ~ 390, 1990.
- 11) 河合 敏, 中川千尋, 岩村節子, 他 : 反回神経麻痺を伴った Hunt 症候群の 1 例. 耳喉頭頸 65 : 951 ~ 956, 1993.
- 12) 奥野 仁 : 急性末梢性顔面神経麻痺における水痘带状疱疹ウイルス感染の早期診断. 日耳鼻 91 : 1078 ~ 1084, 1988.
- 13) Djupesland G, Berdal P, Johannessen TA, et al. : The role of viral infection in acute peripheral facial palsy. Acta Otolaryngol 63 : 533 ~ 550, 1967.
-
- 原稿受付 : 平成13年 7 月17日
原稿採択 : 平成13年 9 月 5 日
別刷請求先 : 石川敏夫
〒329-0498 河内郡南河内町薬師寺3111-1
自治医科大学耳鼻咽喉科学教室