 原 著

難治性良性発作性頭位めまい症と考えられた1例

犬飼 賢也¹⁾・高橋紳一郎²⁾・肥塚 泉³⁾

A case of intractable benign paroxysmal positional vertigo

Kenya Inukai¹⁾, Shinichiro Takahashi²⁾, Izumi Koizuka³⁾¹⁾*Inukai ENT Clinic*²⁾*Department of Otolaryngology, Tachikawa General Hospital*³⁾*Department of Otolaryngology, St. Marianna University School of Medicine*

Although the duration of benign paroxysmal positional vertigo (BPPV) is generally short, it can sometimes be long and intractable. We report on a case of intractable BPPV in which the duration of disease was four years. The patient was a 38-year-old woman. She had suffered from bilateral hearing loss since childhood. Since October 2005, she experienced severe vertigo whenever she turned her head. She had consulted other doctors, but the symptoms persisted. On June 20, 2007, she was referred to the Otolaryngology Department of Tachikawa General Hospital. The positional nystagmus test demonstrated apogeotropic nystagmus in a bilateral position with a duration of more than one minute. Upbeat nystagmus with a clockwise direction (from the examiner) was seen in sitting position using the Dix-Hallpike method. A pure tone audiogram showed high tone damage causing sensorineural hearing loss bilaterally. A caloric test did not show canal paresis. Magnetic resonance imaging (MRI) of the brain showed normal findings. MRI of the inner ears showed narrowing throughout the entire semicircular canal bilaterally (mainly the bilateral anterior semicircular canals). The Brandt-Daroff method induced nausea; therefore that examination method was abandoned. Habitual training advocated by St. Marianna University, the Head shaking method from Yamaguchi University, and the Non-specific training method from Toho University did not improve the nystagmus. Vestibular training by Kitazato University improved her vertiginous feeling. The direction of nystagmus changed variously during the course. The vertiginous feeling had almost disappeared in June 2009, but nystagmus persisted. We considered that cupulolithiasis in the bilateral lateral semicircular canals often shifted to canalolithiasis in various portions of the semicircular canals. Appropriate physical therapy improved the subjective symptoms.

Key words: apogeotropic nystagmus, upbeat nystagmus with a clockwise direction, narrowing throughout the semicircular canal, physical therapy

¹⁾ いぬかい耳鼻科クリニック ²⁾ 立川総合病院耳鼻咽喉科 ³⁾ 聖マリアンナ医科大学耳鼻咽喉科

はじめに

良性発作性頭位めまい症 (Benign paroxysmal positional vertigo: BPPV) は多くの場合、短期間で治癒することが多い。しかし、まれに難治性のものが存在する。今回、症状が4年間持続していた難治性のBPPVと考えられた1例を経験したので報告する。

症 例

症例：38歳女性

主訴：回転性めまい

既往歴：幼少時より近耳耳鼻科で難聴を指摘されている。

現病歴：2005年3月、第一子を出産し、その後授乳をした。6月から両耳鳴(ジー)を自覚した。10月より寝起き時にめまいが出現するようになった。他院にて加療を受けていたが改善せず、2007年6月20日立川総合病院耳鼻科へ紹介された。

現症(図1)：鼓膜は正常で、顔面、手足のしびれはなく、構音障害、複視もみられなかった。注視眼振検査では眼振を認めず、頭位眼振検査で、右下頭位・左下頭位共に眼振持続時間は1分以上の、方向交代性上向性眼振を認めた。頭位変換眼振検査では、右下頭位で、検者からみて時計回りの回旋成分を伴った上眼瞼向き眼振を認め、1分以内に治まった。良性発作性頭位めまい症(病巣不明)を考えた。歩行で来院したが、眼振検査後、吐き気が出現し、しばらくベッド上安静となった。聴力検査は施行できなかった。

経過(図1)：まず、Brandt-Daroffの方法¹⁾を指導したが吐き気が強くして施行できず、聖マリアンナ医大式の非特異的頭位治療²⁾を勧めた。7月4日には頭位眼振検査にて左下頭位で右向き眼振を認め、めまい感もあった。右下では眼振を認めず、めまい感もなかった。また、頭位変換眼振検査における座位で、検者からみて時計回りの回旋成分を有する上眼瞼向き眼振を認めた(図1)。7月11日の頭部MRIで異常所見を認めなかった。内耳3D-MRIでは両側において、すべての半規管で狭小化が見られ、特に前半規管で著明であった(図2)。7月27日の聴力検査の結果は、両側とも高音漸傾型感音難聴であった(図3)。8月8日の視標追跡検査では異常なく、温度刺激検査で半規管麻痺を認めなかった。また、固視抑制試験は正常であった。水平(外側)半規管型

BPPVのクブラ結石型を考えた。

9月5日より山口大の頭振り頭位治療³⁾を行った。9月19日頭位眼振検査での方向交代性上向性眼振が持続していたので、バイブレーターで刺激しながらの頭振り頭位治療を指導した。しかし10月17日再診時、方向交代性上向性眼振は消失しなかった。患側を決定するために、neutral position⁴⁾を見つけようとしたが、はっきりしなかった。この時は左下頭位よりも右下頭位の方が、めまい感は強かった。脊髄小脳変性症も考え、11月21日神経内科受診を勧めた。家族歴はなく、眼球運動正常、注視眼振は認めず、バレー兆候なく、歩行も正常であった。頭部MRI(7月11日撮影)を再評価したが、小脳、脳幹の萎縮を認めなかった。よって脊髄小脳変性症については否定的であるという結果になった。引き続きバイブレーターで刺激しながら頭振り頭位治療を行うよう指導した。2008年1月、左下頭位でめまい発作が出現した。1月16日時点の診察では右下頭位より左下頭位で、めまい感が強かった。

4月には自覚症状はやや改善したが、5月7日時点で方向交代性上向性眼振は残存した。下向性眼振に変わらなかったためその時点では、Lempert法⁵⁾は行わなかった。6月4日より聖マリアンナ医大式非特異的頭位治療²⁾を再度行うよう指導した。8月5日自動車での追突事故に遭遇し、事故後、仰臥位でのめまい感が改善した。しかしその後も上向性眼振が残存したため、東邦大の非特異的頭位治療⁶⁾を指導した。

2009年1月1日に仰臥位での回転性めまいが再発した。1月7日の時点で、方向交代性上向性眼振および、頭位変換眼振検査における座位正面で、検者からみて反時計回りの回旋成分を伴う下眼瞼向き眼振を認めた。北里大式平衡訓練⁷⁾を勧めた。1月下旬、第二子を妊娠した。5月8日、妊娠一般検査として梅毒反応を調べたが陰性であった。

6月下旬には寝返りで浮動感が出現したが、日常生活に支障はなくなった。10月も寝起き時の浮動感は残存した。頭位眼振検査での方向交代性上向性眼振を相変わらず認めたが、眼振出現中の自覚症状はなかった。10月6日時点では頭位変換眼振は消失していた。10月、第二子を出産した。その後来院はしていないため2010年4月の時点で、

図1 臨床経過

水平性眼振はすべて1分以上持続し、垂直回旋混合性眼振はすべて1分以内に治まった。

電話で病状を尋ねた。2009年の10月の時と同様、寝起き時の浮動感はあるが日常生活に支障はなく、また回転性めまい発作は起こしていない、とのことであった。

考察

方向交代性上向性頭位眼振は、かつては中枢疾患、特にテント下の疾患に多い⁸⁾とされてきた。問診上ふらつきが強く、頭位眼振検査で方向交代性眼振が認められる場合は、後頭蓋窩の腫瘍や、循環障害、脊髄小脳変性症などが疑われる⁹⁾。一方、多くの報告が蓄積されるにつれ、末梢性疾患を原因とする場合もまれではないことがわかった。原因として、前庭神経炎、突発性難聴、メニエール病、内耳梅毒、循環障害、音響外傷、BPPVなどがあげられている⁸⁾。頭位を維持する限り持続する方向交代性上向性眼振がみられた場合は水平(外側)半規管BPPV(クブラ結石症)と診断できる⁹⁾。本症例は中枢性疾患を疑わせる症状、画像上の所見、機能検査上の所見も認めず、神経内科を受診し脊髄小脳変性症は否定された。前庭神経炎、突発性難聴、メニエール病、内耳梅毒、

音響外傷は症状、経過、諸検査より否定的である。循環障害はありえるが、特異的な症状はないので肯定も否定もできない。ほぼ一貫して頭位眼振検査で右下頭位、左下頭位共に1分以上持続する方向交代性上向性眼振を認め、中枢性疾患を疑わせる症状、画像上の所見、機能検査上の所見も認めず、水平(外側)半規管BPPV(クブラ結石症)の存在が強く疑われた。患側を決定するために、neutral position⁴⁾を見つけようとしたが、はっきりせず、また、右下頭位と左下頭位でのめまい感の強さは診察の度に变化した。さらに、両側の難聴があり、内耳MRI所見で両側の半規管の狭小化がみられることより患側は両側と考えた。

一度に複数の半規管病変が存在することが報告されている¹⁰⁾。垂直回旋混合性眼振は前半規管あるいは後半規管由来で、1分以上持続すればクブラ結石症、1分以内であれば半規管結石症とされている¹¹⁾。本症例は経過中、頭位眼振検査、頭位変換眼振検査において、垂直回旋混合性眼振がみられるが、それらはすべて、1分以内に減衰する眼振であった。よって、半規管結石症の存在も考

図2 内耳3D-MRI所見

すべて頭側からみた像。本症例右側は前半規管の上部構造の狭小化 (5.3 mm の範囲), 後半規管 (0.8 mm の範囲), 外側半規管 (0.8 mm の範囲) の一部狭小化が見られた。本症例左側も前半規管の上部構造の狭小化 (5.3 mm の範囲), 後半規管 (0.5 mm の範囲), 外側半規管 (0.8 mm の範囲) の一部狭小化が見られた。正常例は立川総合病院放射線科の提供による。MRI 画像は Siemens 社製の MAGNETOM SYMPHONY (1.5 Tesla) を用い, TR=7.04 ms, TE=3.52 ms (T2 強調画像), スライス厚 0.4 mm, マトリックス数 192, 分解能 0.7×0.7 , fov (field of view) 140 mm $\times$ 140 mm で撮影した。

えられる。すなわち, 両水平 (外側) 半規管型のクプラ結石症があり, そこからしばしば様々な半規管結石症に移行し, 多彩な眼振所見をとったと考えられた。

3D-MRI 検査により蝸牛, 前庭, 半規管および内耳道の形態異常を一画像上で, 同時に瞬時に, 視覚的・感覚的にとらえることが可能となった¹²⁾。内耳 MRI は非典型的かつ難治性の BPPV の内耳の形態異常を調べるのに安全で役に立つ方法である¹³⁾。Schratzstaller ら¹⁴⁾, Horii ら¹⁵⁾ も難治性 BPPV に形態異常を認めたと報告している。内耳 MRI 所見から診断される半規管の狭小化と閉塞は, 先天的な狭小あるいは耳石片が詰ま

図3 聴力検査所見

両側とも高音漸傾型感音難聴であった。

った結果と考えられている¹⁵⁾。本症例は内耳 MRI 所見において, 両側共に形態異常を認めた。経過から推測すると, 先天的な内耳の形態異常と考えられる。但し, 内耳奇形の診断に関しては, MRI のみでは診断特異度に欠ける場合があり, CT を併用することが推奨されている。また, MRI の内耳所見はアーティファクト, 再現性も考慮しなければならない。本症例では, CT は撮影されておらず, また, MRI は一度しか撮影していないため, 機会をみて CT 撮影, MRI の再検査を考慮する必要があると思われる。

交通事故は BPPV の原因になることが報告されている¹⁶⁾。本症例では, 事故後に自覚症状がやや改善した。事故の際に受けた外力が, 何らかの力学的作用を引き起こした可能性が示唆されるが, 詳細は不明である。

山中¹⁷⁾ は, 「骨における病態と同様, 耳石もカルシウム吸収の亢進により脆く萎縮して, いわば耳石脆弱 (粗鬆) 症の状態になり, その結果, 大量の脆弱耳石が容易に剥脱され, BPPV の再発が生じやすくなる」と述べている。産褥期は母乳から 1 日約 220 mg のカルシウムが喪失¹⁸⁾, 妊娠後半は骨吸収が亢進する¹⁹⁾。カルシウム代謝異常で代表的な疾患に骨粗鬆症があるが, Vibert ら²⁰⁾ は 50 歳から 85 歳までの短期間に頻回に再発する女性 BPPV 患者 32 症例の 75% に骨量減少と骨粗鬆

症を認め、BPPVの成因に骨粗鬆症の関係をあげている。授乳では大量のカルシウムが流出し、妊娠中はカルシウムを蓄積するとされている。本症例は元々内耳の形態異常と機能障害があり、授乳により、カルシウム不足が生じ、発症したと推測される。また、妊娠で改善しているのはカルシウムを蓄積するからではないかと推察される。

治療として本症例では、聖マリアンナ医大式非特異的頭位治療²⁾、山口大式頭振り頭位治療³⁾、東邦大の非特異的頭位治療⁶⁾、北里大式平衡訓練⁷⁾を行った。聖マリアンナ医大式は、非特異的なもので、寝返り運動を繰り返すことによる結石塊の分散を目的としている²⁾。2007年6月20日時点では病変部位が不確定であったので、これを施行した。山口大式は、水平（外側）半規管型のクプラ結石症に対する治療方法で、頭を振って、クプラに付着した結石をはずし、水平（外側）半規管型の半規管結石症に変えた後、Lempert法を行うのもので、水平（外側）半規管型の治療を目的としている³⁾。2007年9月5日時点で、水平（外側）半規管型のクプラ結石症と考え、これを施行した。しかし全く下向性眼振に変わることはなく、成功しなかった。2008年の6月4日より再び聖マリアンナ医大式を再施行の意味で行った。東邦大式は非特異的なもので、これも結石塊の分散を目的としている⁶⁾。2008年10月22日から行ったが、更なる効果を期待してこれを施行した。北里大式は、平衡訓練は前庭系、視覚系、深部知覚系に反復刺激を加え、できるだけ短期間に前庭性左右不均衡の中枢性代償、各系の相互作用の強化、中枢運動系の運動学習を完成させることを目的としている⁷⁾。2009年1月28日から行ったが、内耳病変の治療は難しいと判断し、中枢性代償を期待して行った。眼振を消失させるという意味では、聖マリアンナ医大、山口大、東邦大の頭位治療はいずれも無効と判断した。しかし、自覚症状は改善しているので、目的以外の機序、例えば前庭代償がおこった可能性もある。北里大式⁷⁾は中枢性代償が目的なので、自覚症状がほとんどなくなったことを考えると有効と判断される。

保存的な治療が無効な場合、中枢性疾患の鑑別と患側の決定を慎重に行った上で、手術的治療を考慮する²¹⁾とある。しかし本症例では、中枢性病変は否定されているが患側は両側が考えられ、ま

た眼振は残存しているが日常生活に支障はないため、水平（外側）半規管遮断術の適応ではないと思われた。

方向交代性上向性眼振を示す水平（外側）半規管型BPPVは方向交代性下向性眼振を示すものよりも治癒までに長い日数を要することが多い²²⁾。方向交代性上向性眼振を示す水平（外側）半規管型BPPVは治癒しない症例も少なからず存在する²³⁾。難治例のなかにはクプラ自体が石灰化している可能性が示唆されている²⁴⁾。本症例は、現時点では、難治性水平（外側）半規管型BPPVが基本にあると考えているが真の病態は不明である。さらに、方向交代性上向性眼振を有する症例が、後に脊髄小脳変性症と診断された例¹⁵⁾もあり、注意を要する。すなわち、経過によっては別の診断に変わることもありえるため、今後も経過観察が重要と思われる。

まとめ

1. 4年間症状が持続している難治性のBPPVと考えられた1例を報告した。
2. 内耳MRIにてすべての半規管の狭小化を認め、特に前半規管で著明であった。
3. 両水平（外側）半規管型のクプラ結石症があり、その結石がしばしば様々な半規管に落ちるため、多彩な眼振所見をとったと考えられた。
4. 平衡訓練により自覚症状は改善したが眼振は残った。

本論文の要旨は第68回日本めまい平衡医学会（徳島、2009）でポスター演題として発表した。

文 献

- 1) Brandt T, Daroff RB: Physical therapy for benign paroxysmal positional vertigo. Arch Otolaryngol 106: 484-485, 1980
- 2) 佐藤茂樹, 肥塚 泉: 良性発作性頭位めまい症に關与する耳石の基礎的知見に対する非特異的運動療法. Equilibrium Res 65: 161-167, 2006
- 3) 堀池 修, 池田卓生, 橋本 誠, 他: 座位での頭振りを施行させた外側半規管型（クプラ結石症）頭位めまい症. Equilibrium Res 61: 172-179, 2002
- 4) 飯田政弘: 外側半規管型BPPVの病態と臨床像. JOHNS 22: 172-176, 2006

- 5) Lempert T, Tiel-Wilck K: A positional maneuver for treatment of horizontal-canal benign positional vertigo. *Laryngoscope* 106: 476-478, 1996
- 6) 瀬戸 陽, 小林真由美, 小田 恂, 他: 良性発作性頭位めまい症の運動療法について. *Equilibrium Res* 62: 473, 2003
- 7) 長沼英明: 難治性 BPPV の対策. *JOHNS* 22: 196-200, 2006
- 8) 鈴木 衛: 方向交代性頭位眼振の臨床. *耳鼻臨床* 93: 177-183, 2000
- 9) 重野浩一郎: フレンツェル, ビデオフレンツェル. 肥塚 泉編. *すぐに役立つ外来耳鼻咽喉科疾患診療のコツ*. 16-19頁, 全日本病院出版会, 東京, 2008
- 10) Lopes-Escames JA, Molina MI, Gamiz M, et al.: Multiple positional nystagmus suggests multiple canal involvement in benign paroxysmal vertigo. *Acta Otolaryngol* 125: 954-961, 2005
- 11) Herdman SJ, Tusa RJ.: Benign paroxysmal positional vertigo. In ed Herdman SJ. *Vestibular rehabilitation second edition*. pp 451-475, F.A. Davis Company, Philadelphia, 2000
- 12) 土井勝美, 久保 武: 耳下領域の3次元画像診断 前庭水管拡大症. *JOHNS* 22: 1215-1219, 2006
- 13) Dallan I, Bruschini L, Neri E, et al.: The role of high-resolution magnetic resonance in atypical and intractable benign paroxysmal positional vertigo: our preliminary experience. *ORL* 69: 212-217, 2007
- 14) Schratzenstaller B, Wagner-Manslau C, Alexiou C, et al.: High-resolution three-dimensional magnetic resonance imaging of the vestibular labyrinth in patients with atypical and intractable benign positional vertigo. *ORL* 63: 165-177, 2001
- 15) Horii A, Kitahara T, Osaki Y, et al.: Intractable benign paroxysmal positioning vertigo: long-term follow-up and inner ear abnormality detected by three-dimensional magnetic resonance imaging. *Otol Neurotol* 31: 250-255, 2010
- 16) 重野浩一郎, 奥 竜太, 隈上秀高, 他: 良性発作性頭位めまい症と睡眠頭位. *Equilibrium Res* 59: 236-242, 2000
- 17) 山中敏彰: 難治性 BPPV の治療—対応と処置—. *Equilibrium Res* 65: 144-155, 2006
- 18) Ziegler EE, Fomon SJ: Major minerals. In *Infant nutrition*. 2nd ed. pp 267-297, WB Saunders company, Philadelphia, 1974
- 19) Seki K, Makimura N, Mitsui C, et al.: Calcium-regulating hormones and osteocalcin levels during pregnancy, a longitudinal study. *Am J Obstet Gynecol* 164: 1248-1252, 1991
- 20) Vibert D, Kompis M, Hausler R: Benign paroxysmal positional vertigo in older women may be related osteoporosis and osteopenia. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 112: 885-889, 2003
- 21) 北原 紇: BPPV の手術的治療. *JOHNS* 22: 201-206, 2006
- 22) 林 裕次郎, 國弘幸伸, 東野一隆, 他: 方向交代性頭位眼振の臨床的検討. *Equilibrium Res* 59: 198-205, 2000
- 23) White JA, Coale KD, Catalano PJ, et al.: Diagnosis and management of lateral semicircular canal benign paroxysmal positional vertigo. *Otolaryngol Head Neck Surg* 133: 278-284, 2005
- 24) 國弘幸伸: 外側半規管型 BPPV の診断と治療. *JOHNS* 22: 178-182, 2006

別刷請求先: 犬飼賢也