 原 著

斜視を合併した良性発作性めまい症が疑われた一例

鈴木 法臣¹⁾・守本 倫子¹⁾・五島 史行¹⁾²⁾

The case of benign paroxysmal vertigo with perspective

Noriomi Suzuki¹⁾, Noriko Morimoto¹⁾, Fumiyuki Goto¹⁾²⁾*¹⁾Department of Otorhinolaryngology, National Center
for Child Health and Development**²⁾Department of Otorhinolaryngology, National Hospital Organization
Tokyo Medical Center*

Pediatric subjects with vertigo are rare in Japan. Benign paroxysmal vertigo (BPV) is a frequent disease similar to orthostatic hypotension. We report herein on a case of BPV in which psychological dizziness had previously been diagnosed. A 5-year-old girl visited our hospital complaining of repeated attacks of vertigo for 3 years. She had intermittent strabismus, and the result of her stabilometry showed functional symptoms, so the doctor who had treated her previously at the age of 4 diagnosed psychological dizziness with visual influence, and observation was started. Her symptoms persisted for 12 months however, and she visited our hospital. Her equilibrium and neurological status were examined. And we asked her family about the situation at the time of attack in detail. Based on the interview, we discovered that she felt fear at the time of attacks, and her family had a history of migraines. Based on our finding, we diagnosed her as having BPV. Vestibular rehabilitation on its own effected a cure. History taking is so important in the diagnosis of BPV, so that we may fully understand the diagnostic criteria prior to examination of pediatric subjects with vertigo.

Key words: BPV, migraine, pediatric vertigo, vestibular rehabilitation

はじめに

一般の耳鼻咽喉科外来では小児のめまいを診察する機会は少なく、頻度が少ないため診断にも苦慮することが多い。問診では本人からの訴えのみ

で病状を把握することは困難であり、家族など周囲からの問診が診断には重要である。さらに、小児では診断に必要なすべての臨床検査を行うことが成人に比較し困難である。

成人のめまいで最も頻度が高い良性発作性頭位めまい症(BPPV)は小児ではほとんど見られず、一方良性発作性めまい症(BPV)、片頭痛関連めまい(MAV)は小児で高頻度に見られる疾

¹⁾ 国立成育医療研究センター耳鼻咽喉科

²⁾ 国立病院機構東京医療センター耳鼻咽喉科

図1 重心動揺検査
閉眼時に動揺面積の減少を認めた。

患である¹⁾。BPVの診断基準は国際頭痛分類で規定されているが、2013年に改訂された第3β版においても家族からの問診に関する内容が追加されている²⁾。

今回、心因性めまいと診断されていたが、問診・検査の継続によりBPVも疑われると評価し、前庭リハビリテーションのみで症状改善が得られた症例を経験したので報告する。

症例提示

症例は5歳女児で、主訴はめまい。2歳頃から「くるくるまわる」という訴えがあった。また間欠性斜視があり、めまいは斜視の出現時と一致することもあった。4歳時に前医を受診したところ、重心動揺検査にて閉眼時に動揺面積の減少を認めたため、めまいは機能性の疑いがあると評価された。このことから、斜視によって前庭と眼運動系の発達段階におけるミスマッチが生じたことが影響した心因性めまいと診断され経過観察となった。日常生活への大きな影響はなかったが、その後も1年以上症状が続くため当科を受診した。発達含め、既往歴は特になかった。

検査所見では足踏み試験、指鼻試験、標準純音聴力検査では異常を認めなかった。重心動揺検査は前医と同様に閉眼時に動揺面積の減少を認めた(図1)。自発眼振は認めず、頭位変換による眼振の誘発も認めなかった。ETT (eye tracking test) は追視が困難であり saccadic となっていた(図2)。頸部前庭誘発筋電位 (cVEMP) は右側

図2 ETT (eye tracking test)
追視が困難であり saccadic だった。

で反応低下を認めた(図3)。

外来では家族からの問診を詳細に行った。そこで発作の状況や家族歴などについて表1に挙げたことが新たに聴取できた。

本症例に対し我々は片頭痛の家族歴があることから、斜視を合併したBPV疑いと診断した。自宅で行う前庭リハビリテーション(以下、前庭リハ)を本人・家族に指導し、めまい日記の記録作成を指示した。前庭リハは五島らが行っているもの(垂直、水平方向の注視眼球運動、追跡眼球運動、頭部、眼球の共同運動を取り入れた7種類の動作を1日2-3回繰り返させた³⁾)を用いて1ヵ月程行った。約2ヵ月後には発作頻度は軽減し、

図3 頸部前庭誘発筋電位 (cVEMP)
右側で反応低下を認めた。

表1 家族からの問診内容

【家族からの問診】

- ① 症状は突発的に起こる。
- ② 症状出現時は恐怖感を訴えるものの、廊下をまっすぐ走ることができる。
- ③ 症状は、走り回って泣いて1分ほどでおさまることが多い。
- ④ 幼稚園で鉄棒やブランコをした後は夜に症状が出やすい。
- ⑤ 前転する、ジェットコースターに乗るなど回転すると症状が誘発されやすい。
- ⑥ 両親ともに片頭痛歴を有する。

その後も症状の再燃なく経過しているため、現在は投薬せずに経過観察している (図4)。

考察

① 良性発作性めまい症 (benign paroxysmal vertigo: BPV)

BPVの診断基準は国際頭痛分類で規定されている。これまでの第2版 (表2) から2013年に新たに第3β版 (表3) が作成された。変更・追加点としては、疾患の分類が「小児周期性症候群の小児良性発作性めまい症」から「片頭痛に関連する周期性症候群の良性発作性めまい症」に変わったこと、診断基準に親からの問診も重視することが追記されたこと、めまい発作時の随伴症状が増えたことなどである²⁾。

BPVは本人の片頭痛や家族の片頭痛歴を有す

図4 前庭リハビリテーション指導後のめまい回数
前庭リハ指導後は発作頻度は減少した。

表2 小児良性発作性めまい症 (BPV: Benign paroxysmal vertigo of childhood) の診断基準

国際頭痛分類第2版 (ICHD-II) より抜粋

- 1.3.3 小児良性発作性めまい (Benign paroxysmal vertigo of childhood)
 - A. Bを満たす発作が5回以上ある。
 - B. 前触れなく生じ数分～数時間で自然軽快する頻回・重度の回転めまい発作 (注1)
 - C. 発作間欠期には神経所見および聴力・平衡機能は正常
 - D. 脳波所見は正常

(注1. 眼振または嘔吐を伴う場合が多い。片側性拍動性頭痛がめまい発作の際に生じることがある。)

表3 良性発作性めまい症 (BPV: Benign paroxysmal vertigo) の診断基準

国際頭痛分類第3β版 (ICHD-III β) より抜粋

- 1.6.2 良性発作性めまい (Benign paroxysmal vertigo)
 - A. BおよびCを満たす発作が5回以上ある
 - B. 前触れなく生じ、発現時の症状が最強で、意識消失を伴うことなく数分～数時間で自然寛解する回転性めまい発作 (注1)
 - C. 下記の随伴症状・徴候のうち少なくとも1項目を満たす
 1. 眼振
 2. 運動失調
 3. 嘔吐
 4. 顔面蒼白
 5. 恐怖
 - D. 発作間欠期には神経所見および聴力・平衡機能は正常
 - E. そのほかの疾患によらない

(注1. 回転性めまいをもつ年少児がぐるぐる回る症状を説明することは難しいかもしれない。発作的な落ち着きのなさが親によって観察される場合、これが年少児の回転性めまい発作を説明しうることがある)

ることが多く、片頭痛関連めまいと診断基準においても重なる部分も多い⁴⁾。国際頭痛分類第3β版においても『『良性発作性めまい』と『前庭性片頭痛』との関連については、さらなる検討が必要』とされている。

治療法にはこれまでのところ一定の見解は無い。現状では症状出現時の年齢により苦痛度が異なることを考慮して治療法を検討する必要があるとされている。発作期間が短い場合は投薬などの治療が必要ないこともある。文献では成人疾患の片頭痛関連めまいに準じ、塩酸ロメリジンを使用したところ有効率が高かったという報告がある。またBPVが、セロトニン代謝障害との関わりを指摘されている片頭痛や起立性調節障害との合併が多いとされることから、抗セロトニン薬を使用し有効であったという報告もある⁴⁾。

長期予後はまだ明らかではないが、めまいは発症から1年以内に約60%、3-4年以内に約90%の症例において消失するという報告があり比較的良好とされるが、将来片頭痛に移行する確率が高いとされている⁴⁾⁵⁾。

②本症例の診断と治療

1. 診断

(1) 問診

本症例は重心動揺検査の結果が機能性疑いであったことと、斜視を認めたことから早期に心因性めまいと診断されていた。そのため、前医では本人・家族に片頭痛に関する問診は詳細には行われていなかった。

BPVは発作の間欠時には器質的・機能的異常を認めない。そのため診断には診断基準を理解し、発作時の状況や片頭痛の有無、片頭痛の家族歴など本疾患の臨床的特徴を考慮した上で問診を行うことが重要である。小児のめまいの診察では、本人・家族から十分に問診を行うことが重要である。また問診にあたっては、一回の診察のみでは十分な情報を得ることは難しい場合があることも考慮しなければならない。

(2) 検査

本症例では発作間欠期に行った足踏み検査、指鼻試験、聴力検査はいずれも正常であり、診断基準を満たした。

cVEMPは右側の反応低下を認めた。本邦では小児におけるcVEMPと前庭障害に関する報告は

ないが、ChangらはBPV症例20名中70%で間欠期に施行した温度刺激検査とVEMPに異常が認められたと報告している⁶⁾ことから本症例においても矛盾しないと判断した。

重心動揺検査は機能性疑いを示す結果であった。体平衡に必要な前庭覚、視覚、体性感覚と認知感情機能との間には関係があることが重心動揺計を用いた研究で示されている。不安は過度の覚醒状態と定義され、焦燥感や不安感などの心理的な症状の他に心拍促進や発汗など様々な身体症状を伴う。不安の亢進により前後軸の動揺距離が増大し、その結果動揺面積が増大することが報告されている。この不安の影響は開眼時にのみ観察され、閉眼によって消失する。この理由として不安は視覚情報の処理過程に影響を与えられられている⁷⁾。本症例においても、繰り返しためまい発作による予期不安が生じたために開眼時には動揺面積が増大し、閉眼によってその影響が解消されたことが、検査結果の要因と考えられた。

(3) 斜視の影響

斜視は近医で経過観察中であり、視力検査などに異常所見は認めず、持続時間も数分以内と短時間の間欠性斜視だった。斜視により前庭と眼運動系の発達段階におけるミスマッチが生じ、めまいの要因となっていた可能性も考えられた。

(4) 発作の誘発因子

本症例では、鉄棒や前転など回転運動を行った後にめまい発作が出現する傾向があった。BPVの発作誘発因子に関しては、検索し得た国内・海外のいずれの文献にも記載はなかった。片頭痛関連めまい症例におけるcVEMP・oVEMPの異常⁸⁾と、片頭痛症例における重心動揺検査の異常⁹⁾とから、それぞれ片頭痛患者には前庭頸反射・前庭眼反射と前庭脊髄反射の機能低下するため、過度の前庭刺激に対して中枢でのミスマッチが生じ、前庭自律神経反射が惹起され不快症状、しいてはめまいが発生しやすいという報告がある⁹⁾。しかしながら本症例では回転運動の強度とめまい発作の頻度との間に明らかな関連があったということは確認できず、回転運動の関与は不明である。

2. 治療

本症例は前庭リハのみで症状の改善を得られた。BPVは一般的には予後は良好とされ、積極的な治療が必要ではないこともある。薬物治療の

報告などもあるが⁴⁾、本症例ではめまいによる日常生活への影響が少なかったため、薬物治療は行わずに前庭リハのみで初期治療を行った。前庭リハが有効な機序として、小脳の中樞代償を介した前庭機能の改善のみならず、めまいによる行動制限という不適応行動を改善するという行動療法としての機能が報告されている³⁾。本症例は前述したように前庭障害の可能性も否定できないが、めまいに対する予期不安の改善にも前庭リハが有効だったと考えられる。

薬物治療は家族と相談したうえで行わなかった。今後も症例ごとに検討し、必要があれば早期からの治療も検討するべきと考えるが、これまでのところ症例数も少なく、薬物治療の必要性や有効性については十分なエビデンスがないため今後ともさらなる検討が必要である。

ま と め

1. 心因性めまいと診断されていたが、問診・検査の継続により良性発作性めまい症 (BPV) も疑われた症例を経験した。

2. 前庭リハビリテーションにより症状は軽減した。

3. 小児のめまいの診察では、本人・家族から十分に問診を行うことが重要である。また問診にあたっては、一回の診察のみでは十分な情報を得ることは難しい場合があることも考慮しなければならない。

文 献

- 1) Gioacchini FM, Alicandri-Ciufelli M, Kaleci S et al.: Prevalence and diagnosis of vestibular disorders in children: a review. *Int J Ped*

Otorhinolaryngol 78: 718-724, 2014

- 2) 国際頭痛分類第三版 beta 版. 2014
- 3) 五島史行, 新井基洋, 小川 郁: 慢性めまい患者に対する外来前庭リハビリテーションの治療効果. *日本耳鼻咽喉科学会会報* 116: 1016-1023, 2013
- 4) 五島史行, 守本倫子, 大原卓哉, 他: 小児良性発作性めまい症の臨床的特徴. *日本耳鼻咽喉科学会会報* 114: 562-567, 2011
- 5) Drigo P, Carli G, Laverda AM: Benign paroxysmal vertigo of Childhood. *Brain Dev* 23: 38-41, 2001
- 6) Chang CH, Young YH: Caloric and vestibular evoked myogenic potential tests in evaluating children with benign paroxysmal vertigo. *Int J Ped Otorhinolaryngol* 71: 495-499, 2007
- 7) 五島史行, 林 賢, 堤 知子, 他: 重心動揺計による心因性めまいの投薬治療評価の試み. *Equilibrium Res* 69: 141-146, 2010
- 8) 小宮山櫻子, 中原はるか, 津田幸子, 他: 片頭痛関連めまい症例の前庭頸反射, 前庭眼反射, ならびに臨床症状の検討. *Equilibrium Res* 72: 493-500, 2013
- 9) Ishizaki K, Mori N, Takeshima T et al.: Static stabilometry in patients with migraine and tension-type headache during a headache-free period: Psychiatry and Clinical. *Neurosciences* 56: 85-90, 2002

利益相反に該当する事項なし。