

原 著

当院小児科で施行した起立負荷心電図 (シェロング試験) 40 例の検討

— 体位性頻脈症候群との関連について —

獨協医科大学 小児科学

野村好平 小森慈海 今高城治 吉原重美

要 旨

2020 年春以降, COVID-19 の流行拡大に伴う緊急事態宣言と社会的不安のため不定愁訴で小児科外来を受診する患者が増えた. 多くの患者は不安に伴う一時的な心因反応であるが, 臨床的には起立性調節障害 (OD) の鑑別が大切である. 当院では OD の診断に心電図と自動血圧計を用いたシェロング試験を施行している. 我々は不定愁訴で当院を受診しシェロング試験を実施した患者について, 診療録を基に後方視的に OD の診断とサブタイプ分類を行った. 調査期間は 2020 年 1 月~2021 年 1 月末の 13 カ月で, 対象者 40 名に計 42 回のシェロング試験が行われた. 平均年齢は 13.1 歳, 男子 22 例, 女子 18 例で, 平均 BMI は 19.1 であった. 検査施行は午前 29 例, 午後 11 例であった. 小児起立性調節診断・治療ガイドライン 2015 の身体症状項目による主訴は, 頭痛 23 例, めまい・立ち眩み 12 例, 朝起きられず遅刻や欠席 11 例, 消化器症状 10 例で, 現病歴に 13 例で意識消失を認めていた. シェロング試験は 40 例中 36 例が陽性であった. シェロング試験陽性者の OD サブタイプは体位性頻脈症候群が 23 例を占めていた. 重症度では 13 例が重症に分類された. 不定愁訴のある小児では体位性頻脈症候群の診断を念頭にシェロング試験を行うことが肝要である.

Key Words : POTS, OD テスト, 意識消失, 不定愁訴, 思春期

はじめに

2020 年 1 月に中国武漢から始まった COVID-19 ウイルスの世界的流行により, 日本国内では同年 4 月から緊急事態宣言の下, 小中高生は在宅での生活が長くなった. 同じ頃から当院においても不安症状や不定愁訴を主訴に小児科外来を受診する患者が増えている. 外来診療においてこれらの患者は臨床的に起立性調節障害 (orthostatic dysregulation : OD) の鑑別を要する.

起立性調節障害とは自律神経系の代償的調節機構の破綻に基づく生物学的機能異常と, 心理社会的因子が様々な程度に混ぜ合わさった幅広いスペクトラムからなる病態を持つ疾患である^{1,2)}. OD は起立することによって多

彩な症状が引き起こされる (表 1)^{1,3)}. 表 1 に OD の診断に用いられる 11 の身体症状項目を示す. これらの項目のうち 3 項目以上を認める場合に OD を疑い精査を進めている. 当院児童精神外来では 2015 年から小児起立性調節障害診断・治療ガイドライン¹⁾に基づき, 先述の問診項目に加えて, 起立負荷心電図 (シェロング試験)⁴⁾を行い, OD のサブタイプ分類と身体的重症度を診断している. 本稿では, 2020 年に施行したシェロング試験の結果を後方視的に検討し, OD のサブタイプ分類を行ったので考察を交えて報告する.

対象・方法

対象は 2015 年 1 月から 2021 年 1 月末までに獨協医科大学病院小児科で担当医が問診・病歴を聴取し, OD を疑いシェロング試験を行った症例とした. 初めに各年度の検査件数を後方視的に調査した. 次に 2020 年に該当した症例について診療録をもとに調査し, 次の項目について詳細に分析した. 分析した項目は 1) 年齢・性

令和 3 年 3 月 4 日受付, 令和 3 年 3 月 26 日受理

別刷請求先: 今高城治

〒321-0293 栃木県下都賀郡壬生町北小林 880

獨協医科大学 小児科学

表1 起立性調節障害の身体症状項目¹⁾

1. 立ちくらみ, めまいを起ししやすい
2. 立っていると気持ちが悪くなる, ひどいと倒れる
3. 入浴時あるいは嫌なことを見聞きすると気持ちが悪くなる
4. 少し動くと動悸, 息切れがする
5. 朝起きが悪く, 午前中の調子が悪い
6. 顔色が青白い
7. 食思不振
8. 強い腹痛を時々訴える
9. 倦怠感あるいは疲れやすい
10. 頭痛をしばしば訴える
11. 乗り物に酔いやすい

表2 シェロング試験の方法⁴⁾

10分間安静臥位にする
↓
10分経過後に安静臥位で心電図・心拍・血圧を測定する
↓
患者を起立させ, 起立直後に心電図・心拍・血圧を測定する
↓
起立後5分の時点で, 心電図・心拍・血圧を測定する
↓
起立後10分の時点で, 心電図・心拍・血圧を測定する
(検査中に被験者が気分不快や立位困難な場合は中止する)

別・体格, 2) 検査を施行した時間, 3) 主訴, 4) 意識消失の有無, 5) 基礎疾患について調査した. また, 該当した症例について6) 臨床診断, 7) 起立負荷心電図の結果, 8) シェロング試験の結果, 9) ODの重症度を調査した.

1) の体格は, 身長と体重からBMIを算定し, 肥満指数とBMIの度数分布をもとに門田が提唱した中学生の肥満度判断基準⁵⁾に従い, やせ (<15), 少しやせ (15 ≤ ~ <17), 普通 (17 ≤ ~ <22), 少し肥満 (22 ≤ ~ <24), 肥満 (24 ≤) とした. 3) の主訴は小児起立性調節障害診断・治療ガイドライン2015の身体症状項目を参考に, 患者自身の優先順位に応じて3項目まであげてもらった. 7) のODの診断基準については, 当院には非侵襲的連続血圧測定装置がないため, 本研究では, より簡易な方法であるシェロング試験(表2)を施行した. シェロング試験の方法は, 心電図と自動血圧測定器を装着し, 患者を診察台上で10分間安静臥位にした後に心電図・心拍・血圧を測定した. 次に, 患者を起立させ, 起立直後, 起立5分後, 起立10分後に心電図・心拍・血圧を測定した. 検査の施行に際しては, 原則医師の付き添いの下, 心電図室で臨床検査技師が施行した. な

表3 シェロング試験の判定基準⁴⁾

① 収縮期血圧 21 mmHg 以上の血圧低下
② 脈拍数の 20 以上の上昇
③ 脈圧の 21 mmHg 以上の低下
(①, ②, ③を1つ以上満たすものを陽性とする)

お, 現病歴で意識消失が疑われた症例に限らず, 検査中の急変に対応するため担当医がベッドサイドないし迅速に対応できる場所で待機する体制を整えた. 起立中に気分不快や低血圧に伴う症状があれば, ただちに中止とした.

シェロング試験の結果については(表3)の判断基準に基づいて判断した. さらに, ODのサブタイプと重症度について小児起立性調節障害診断・治療ガイドライン2015を参考に診断した(表4).

9) ODの重症度については小児起立性調節障害診断・治療ガイドライン2015を参考に, 軽症中等症と重症に分類した. ODのサブタイプは, 体位性頻脈症候群(postural tachycardia syndrome; POTS)・血管迷走神経性失神(vasovagal syncope; VVS)・遷延性起立性低

表4 起立性調節障害の重症度分類⁸⁾

病型	身体的重症度		
	軽症	中等症	重症
体位性頻脈症候群 postural tachycardia syndrome : POTS	起立時心拍 \geq 115 or 心拍増加 \geq 35		起立時心拍 \geq 125 or 心拍増加 \geq 45
血管迷走神経性失神 vasovagal syncope : VVS	INOH または, POTS を伴わない		INOH または, POTS を伴う
遷延性起立性低血圧 delayed orthostatic hypotension : DOH	重症度を判定できる基準はない		
症状や日常生活状況	ときに症状があるが日常生活, 学校生活への影響は少ない	午前中に症状が強くなり, しばしば日常生活に支障があり, 週に1~2回遅刻や欠席がみられる	強い症状のため, ほとんど毎日, 日常生活・学校生活に支障をきたす

血圧 (delayed orthostatic hypotension : DOH) に分類した。なお, シェロング試験中に気分不快や低血圧に伴う症状を起こした例は重症に分類した。

結 果

当院小児科外来において過去5年間に行われたシェロング試験の検査件数は, 2015年31件, 2016年36件, 2017年31件, 2018年26件, 2019年26件, また2020年は42件であった。以下, 2020年の40例(42件)について詳細にまとめる。

1. 対象患者の背景因子

対象患者の背景因子(表5)として, 年齢・性別・体格・主訴・意識消失の有無・基礎疾患・その他を示した。また, 対象となった患者数は40例, 検査回数は42件で, 2例は2度検査を施行していた。

検査施行時の年齢は4歳6か月から17歳8か月で, 平均は13.1歳であった。対象者の就学状況は, 未就学児1例, 小学生12例, 中学生23例, 高校生が4例と全体の57.5%(23/40例)は中学生が占めていた。性別は男子22例, 女子は18例であった。体格はBMIで評価し, やせ1例, 少しやせ8例, 普通24例, 少し肥満5例, 肥満が2例であり, 平均のBMIは19.2であった。検査時間は午前31件, 午後11件であった。

外来受診時の主訴(重複あり)は, 小児起立性調節障害診断・治療ガイドライン2015の身体症状項目を参考にした。頭痛23例(57.5%), 意識消失13例〔(32.5%)ただし, けいれんに伴い意識を消失した1例を含む〕, めまい・立ち眩み12例(30.0%), 朝起きられず, 遅刻や

表5 対象患者の背景因子

年齢	13.1 \pm 2.4
性別(男/女)	22/18
身長(cm)	155 \pm 14
体重(kg)	47 \pm 12
BMI(kg/m ²)	19.2 \pm 2.8
やせ	1(2.5%)
少しやせ	8(20.0%)
普通	24(60.0%)
少し肥満	5(12.5%)
肥満	2(5.0%)
検査時間(AM/PM)	31/11
主訴	
頭痛	23(57.5%)
意識消失	13(32.5%)
めまい・立ち眩み	12(30.0%)
起床不良・不登校	11(27.5%)
消化器症状	10(25.0%)
顔色不良	3(7.5%)
入浴時気分不快	2(5.0%)
動悸・胸痛	1(2.5%)
過呼吸	1(2.5%)
意識消失(有/無)	13/27
基礎疾患(有/無)	19/21
てんかん	4(10.0%)
気管支喘息	3(7.5%)
自閉症スペクトラム	2(5.0%)
片頭痛	2(5.0%)
ホルモン分泌異常症	1(2.5%)
クローン病	1(2.5%)
血友病	1(2.5%)
過呼吸	1(2.5%)

表6 シェロング試験の結果と起立性調節障害のサブタイプ診断

診断		起立前	起立直後	起立5分後	起立10分後	シェロング試験 (陽性/陰性)	重症
正常 16例 (37.2%)	SBP (mmHg)	113±13	116±15	111±12	111±12	14/2	0例(0%)
	DBP (mmHg)	66±11	78±10	76±7	79±7		
	PP (mmHg)	47±8	37±10	35±9	32±9		
	HR (bpm)	74±13	93±14	90±11	94±10		
POTS 23例 (53.5%)	SBP (mmHg)	109±10	110±10	108±12	106±12	23/0	10例(24.4%)
	DBP (mmHg)	65±6	76±8	75±6	77±8		
	PP (mmHg)	44±8	33±7	33±9	29±7		
	HR (bpm)	65±9	102±15	97±12	99±13		
DOH 2例 (4.6%)	SBP (mmHg)	118±6	105±11	109	86	2/0	2例(4.9%)
	DBP (mmHg)	66±7	76±11	71	63		
	PP (mmHg)	52±1	27±21	38	23		
	HR (bpm)	68±9	108±3	89	95		

* DOHにおける起立5分後、10分後のデータは1例しかないため標準偏差は記載なし
 SBP (systolic blood pressure) : 収縮期血圧
 DBP (diastolic blood pressure) : 拡張期血圧
 PP (pulse pressure) : 脈圧
 HR (heart rate) : 心拍数

欠席していた例が11例(27.5%)、腹痛・嘔吐・下痢等の消化器症状10例(25.0%)、顔色不良3例(7.5%)、入浴時に気持ちが悪くなる例が2例(5.0%)、動悸・胸痛1例(2.5%)、過呼吸1例(2.5%)であった。現病歴で意識消失が有した例は13例であった。基礎疾患は19例で有しており、その内訳はてんかんで抗けいれん薬を内服中の症例は4例、気管支喘息3例、自閉症スペクトラム2例、片頭痛2例、他であった。

2. シェロング試験の結果・起立性調節障害のサブタイプ診断・重症度

表6には、シェロング試験の結果とODのサブタイプ診断および身体的重症度を示した。シェロング試験の結果、表3に基づいて陽性と判断されたのは40例中37例(92.5%)であり、陰性は3例(7.5%)のみであった。また、診断は、POTS23例(53.5%)、DOH2例(4.6%)、正常16例(37.2%)であり、判定不能が2例(4.6%)であった。その内1例がPOTSとDOHの重複診断であった。重症が13例で、POTSにおいては23例中10例(43.5%)を占めていた。

考 察

ODはかつて「自律神経失調症」、「脳貧血」「立ちくらみ、めまい」⁴⁾など、様々な呼称があった疾患である。

また、怠けや育て方の問題などと誤認されることも少なくなかった。こうした流れを踏まえて、2009年には診断・治療のガイドライン⁶⁾が発表され、疾患概念や治療法などが浸透しつつある。ODとは起立に伴う循環動態の変化に対する生体の代償機構に異常がみられる機能性身体疾患であり、特に自律神経系による循環調節不全が主要原因である⁷⁾。また一方で心理的ストレスによって大脳扁桃体を経て視床下部の自律神経中枢に負の影響を及ぼしやすいことから^{8,9)}、心身症としての側面が強い。すなわち、ODは生物学的機能異常(身体)と心理社会的要因(心)が、様々な程度に混ぜ合わさった幅広いスペクトラムからなる病態である。ODの患者数は小学校高学年から多くなり、中学生で急増する。中学生男子の16.9%、中学生女子の25.6%がOD陽性であり¹⁰⁾、小児科診療において頻度の高いcommon diseaseであるといえる。各々の生物学的特性によって様々なタイプのODが発症すると考えられており、症状は一般的には午前中に強く、午後からは改善する¹⁾。

調査期間である2020年1月から2021年1月末までのデータをもとに、まず我々は対象患者の年齢・性別・体格・主訴・意識消失の有無・基礎疾患をまとめた。性別では、過去の報告では小中高いずれの年齢でも男子より女子が多いとされている¹⁰⁾が、我々の結果では明らかな性差は認めなかった。平均のBMIは19.2と日本小

児内分泌学会の小児のBMI曲線と照らし合わせても明らかな体型的特徴は見いだせなかった。

検査を施行した時間別のシェロング試験陽性率は、午前31件中20件(64.5%)、午後11件中5件(45.4%)と午後でも陽性になる患者がいた。一般にシェロング試験は午前中に施行することとされているが、対象者の中には朝起きるのがつらく来院できない患者も多く、そうした例では午後にシェロング試験を施行した。午後の検査でも一定以上の陽性率を認めたことは、この時間に検査を施行する意義があるといえる。

対象者40例の現病歴に意識消失を認めたのは延べ13例(32.5%)であった。我々の13例のうちシェロング試験陽性者は13例(100%)を占めており、意識消失患者を診察した場合はODを鑑別することは重要である。さらに、意識消失の13例中重症に分類されたのが4例(31%)であった。

POTSとは起立時に頻脈と起立失調症状をきたす疾患であり、本邦ではガイドライン¹⁾によると最も多いサブタイプはINOH(22.8%)であり、次いでPOTS(20.7%)である。POTSは起立中に血圧低下を伴わず、著しい心拍増加(起立3分以後心拍数 \geq 115/分、または、心拍数増加 \geq 35/分)を認めることが特徴である¹⁾。近年、POTSの原因として抗ムスカリン性アセチルコリン受容体抗体の関与を示唆する報告がある¹¹⁾。

我々が暫定的に診断したPOTS(53.5%)はガイドライン¹⁾にあるPOTSの比率(20.7%)を大きく上回った。この結果は、我々が用いたシェロング試験では起立後血圧回復時間の測定をしておらず、INOHは診断できないためPOTSと暫定的に診断したものの中に、頻脈を伴うINOHが含まれている可能性は否定できない。

POTSの疫学調査については2015年から2016年に米国ヴァンダービルト大学で大規模調査が行われた¹²⁾。それによるとPOTSと診断された4,178名を対象に、診断に要した期間は平均 49 ± 89 か月、診断されるまでに受診した医師の数も多いと報告されている。このデータは多くのPOTS患者が、適切な診断・治療を受けられず、長期にわたり症状に耐え忍んでいる現状を示しており、本邦でもそのような実態があることが推測される。POTSの症状は、起立直後の立ちくらみは顕著ではないが、一方で頭痛や倦怠感が強いとされており¹⁾、このような特徴が、いわゆる一般的にイメージされる「起立性」調節障害像と異なり、POTSの診断を困難にしている可能性があるだろう。今回我々は、OD身体症状項目(表1)に該当項目がある児に対して積極的にシェロング試験を行うことで22人をPOTSと暫定診断することができた。

ガイドライン¹⁾ではPOTSに対する薬物療法として、塩酸ミトドリンやプロプラノロールの内服、非薬物療法として、軽い運動や積極的な水分・塩分摂取などが推奨されている。我々が今回診断した23例のPOTS患者は、まだ経過観察中の者もあり、治療を開始した後の患者の症状経過に関しては今後の検討課題である。

COVID-19の流行に伴う社会的不安により心身症としての側面をもつODの患者数は増加していると思われる。起立時の症状を認めなくとも、不定愁訴のある児の背景にPOTSタイプのODがある可能性を我々は念頭におく必要があり、今日のストレスフルで不安定な情勢下では、より積極的にシェロング試験の施行を行うことが望まれる。

文 献

- 1) 日本小児科心身医学会：小児起立性調節性障害診断・治療ガイドライン。小児心身医学会ガイドライン集 改訂第2版。南江堂、pp26-85、2015。
- 2) 呉宗 憲：不登校よび起立性調節障害。小児科診療 **50**：848-849、2018。
- 3) 松島礼子：起立性調節性障害。小児内科 **51**：1669-1674、2019。
- 4) 瀧 正勝：平衡覚領域の検査 シェロングテスト。JOHNS **29**：1563-1565、2013。
- 5) 門田新一郎：中学生の肥満度と不定愁訴との関連について 標準体重法とBMIの比較。日公衛誌 **45**：82-91、1998。
- 6) 日本小児科心身医学会：小児起立性調節性障害診断・治療ガイドライン。小児心身医学会ガイドライン集、第1版 南江堂、2009。
- 7) 青木光広：起立性調節障害によるめまい。ENTONI **200**：38-42、2016。
- 8) 菊池 豊：起立性調節障害。小児科診療 **81**：397-398、2018。
- 9) 高橋一浩：起立性調節障害。小児科 **59**：235-241、2018。
- 10) 日本学校保健会(編)：平成22年度児童生徒の健康状態サーベイランス事業報告書、2012。
- 11) Bryarly M, Phillips LT, Fu Q, et al : Postural Orthostatic Tachycardia Syndrome : JACC Focus Seminar. J Am Coll Cardiol **73** : 1207-1228, 2019.
- 12) <https://potsanddysautonomiajapan.org/bigpotsstudy> 2016 米国のPOTS大規模調査 中間報告(2021/3/1閲覧)。

Examination of 40 Cases of Orthostatic Stress Electrocardiogram (Schellong test) Performed in our Pediatric Department —Relationship with Postural Orthostatic Tachycardia Syndrome—

Kohei Nomura, Itsumi Komori, George Imataka, Shigemi Yoshihara

Department of Pediatrics, Dokkyo Medical University

Since the spring of 2020, a state of emergency has been declared due to the spread of the COVID-19 epidemic. Many patients visited the pediatric outpatient department due to social anxiety and indefinite complaints. Many patients have a temporary psychogenic reaction associated with anxiety. However, clinically, it is important to distinguish it from orthostatic dysregulation (OD). At our hospital, we are conducting a Schellong test using an electrocardiogram and a blood pressure monitor to diagnose OD. We retrospectively diagnosed OD and classified subtypes based on medical records of patients who visited our hospital with indefinite complaints and underwent the Schellong test. The survey period was 13 months from January 2020 to the end of January 2021, and a total of 42 Schellong tests were conducted on 40 patients. The mean age of the patients was 13.1 years, 22 boys and 18 girls, with a mean BMI of 19.1. The tests were performed in 29 cases

in the morning and 11 cases in the afternoon. The main complaints based on the physical symptom items of the Pediatric Orthostatic Regulation Diagnosis and Treatment Guideline 2015 were headache in 23 cases, dizziness in 12 cases, late morning or absenteeism in 11 cases, and digestive symptom in 10 cases. Loss of consciousness was observed in 13 cases. The Schellong test was positive in 36 of 40 cases. Postural tachycardia syndrome (POTS) accounted for 23 cases of OD subtype in Schellong test positive subjects. The severity was severe in 13 cases. In children with indefinite complaints, it is important to conduct the Schellong test with the possibility of POTS in mind.

Key words : POTS, OD test, loss of consciousness, indefinite complaints, puberty