



HOKKAIDO UNIVERSITY

Title	電撃様疼痛の原因探索に難渋した二次性三叉神経痛の1 例
Author(s)	稲本, 香織; 中川, 紗百合; 松下, 貴恵 他
Citation	北海道歯学雑誌, 41(2), 147-152
Issue Date	2021-03-15
Doc URL	https://hdl.handle.net/2115/80692
Type	journal article
File Information	41_02_07.pdf



症例報告

電撃様疼痛の原因探索に難渋した二次性三叉神経痛の1例

稲本 香織¹⁾ 中川紗百合¹⁾ 松下 貴恵¹⁾ 中澤誠多朗¹⁾
坂田健一郎²⁾ 羽藤 裕之²⁾ 渡邊 裕¹⁾ 山崎 裕¹⁾

抄 録：電撃様疼痛の原因探索に難渋したが、最終的には慢性歯槽骨炎による二次性三叉神経痛と考えられた1例を経験したので報告する。

患者は80代女性。骨粗鬆症でアレンドロン酸を4年間服用中で複数回の骨折の既往があり、休薬せずに慢性歯槽骨炎の原因菌である下顎右側第一大臼歯の抜歯を予定した。しかし転倒により受診が中断していた。4か月後、痛くて食事ができないと訴え当科再受診した。同歯の周囲には軽度の炎症所見しか認めず抗菌薬やNSAIDsは無効、CRP陰性であった。痛みは右側下顎神経領域に沿った電撃様疼痛であることが判明し、特発性三叉神経痛を疑いカルバマゼピンの投与を開始した。しかし、明らかな効果は得られずコンプライアンス不良が関係していることも考えられたため、抜歯後の疼痛ならびに全身管理とカルバマゼピンの血中濃度測定を目的に入院下での治療を計画した。下顎右側第一大臼歯は浮遊歯状態で周囲に骨硬化像を認めた。抜歯時、根尖部の舌側骨全体が茶色に変色していたが抜歯のみを施行した。術直後のCTでも、抜歯窩の舌側皮質骨の病変と広範な骨髓炎が認められ、アレンドロン酸を長期服用していたことから、今後、骨吸収抑制薬関連顎骨壊死への移行も懸念された。しかし、抜歯後2日目から電撃様疼痛は消退、抜歯窩の骨露出は4週後には消失し上皮化、術後9か月目のCTでは抜歯窩に新生骨が認められた。術後の良好な経過から電撃様疼痛の原因は、下顎右側第一大臼歯の慢性歯槽骨炎と考えられた。

キーワード：二次性三叉神経痛、電撃様疼痛、慢性歯槽骨炎、カルバマゼピン

緒 言

特発性三叉神経痛と二次性三叉神経痛は、痛みの性状やカルバマゼピンの効果からは鑑別が困難とされている。また、二次性三叉神経痛ではさまざまな疾患が原因になることが知られており、原因特定が困難な場合もある。

今回、著者らは特発性三叉神経痛を疑って疼痛管理を行うも奏功せず、慢性歯槽骨炎の原因菌を抜去後、症状の軽快が得られた。術中所見や術直後の画像所見からは、抜歯窩治癒不全から骨吸収抑制薬関連顎骨壊死（Anti-resorptive agent-related Osteonecrosis of the Jaw: ARONJ）へ移行する可能性も疑われたが、術後の経過から最終的には、慢性歯槽骨炎が電撃様疼痛の原因と考えられた二次性三叉神経痛の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：80代女性。

主 訴：痛みが強く食事ができない。

既往歴：高血圧、甲状腺機能低下症、骨粗鬆症（3度の腰椎、胸椎の骨折既往あり）、躁鬱病、脂質異常症、右頸動脈狭窄によるステント術後。

常用薬：降圧薬（アジルサルタン、アムロジピン）、甲状腺ホルモン（レボチロキシナトリウム）、ビスホスホネート製剤（アレンドロン酸）、抗血小板薬（クロピドグレル、リマプロストアルファデクス）、血管拡張薬（硝酸イソソルビド）、躁状態治療薬（バルプロ酸ナトリウム）、高脂血症治療薬（イコサペント酸、プラバスタチン）、末梢性神経障害治療剤（メコバラミン）、消化性潰瘍用剤（オメプラゾール、レバミピド）、制酸剤（酸化マグネシウム）、胃炎・胃潰瘍治療薬（テプレノン）、抗炎症薬（ロキソプロフェンナトリウム、エトドラク）、緩下薬（センノシド）、漢方薬（芍薬甘草湯、人参養栄湯）

家族歴：特記事項なし。

現病歴：X年3月に当科にて義歯調整を行っていたところ、鉤歯の下顎右側第一大臼歯の動揺が強くなり抜歯を検討した。対診したところ、骨粗鬆症に対し経

¹⁾ 〒060-8586 札幌市北区北13条西7丁目
北海道大学大学院歯学研究院 口腔健康科学分野 高齢者歯科学教室（山崎 裕 教授）

²⁾ 〒060-8586 札幌市北区北13条西7丁目
北海道大学大学院歯学研究院 口腔病態学分野 口腔診断内科学教室（北川 善政 教授）

ロピスホスホネート製剤（アレンドロン酸）を4年間服用していたが、3度の腰椎と胸椎骨折の既往が判明したため、休薬せずに抜歯を予定した。しかし、同年5月に再度の転倒により通院が中断した。同年9月、電撃様の疼痛で食事ができないと訴え当科再受診した。

現 症：

全身所見：身長155.2 cm，体重55.5 kg，BMI 23.0，血圧210/105 mmHg。痛みのため食事が十分に摂取できず、夜間帯は不眠も続き衰弱傾向で、近医内科で2週ごとに点滴（薬剤不明）と経腸栄養剤が処方されていた。転倒後の歩行障害が回復しておらず移動は車椅子を使用していた。

口腔外所見：顔貌左右対称で、顔面皮膚の発赤や知覚障害は認めなかった。また顔面部に痛みのトリガーゾーンは認めなかった（図1）。

口腔内所見：下顎右側第一大臼歯はC4で、周囲歯肉は軽度の発赤を認めたが、腫脹は認めなかった。患歯は軽度の打診痛を認め、動揺度は3度で、歯周ポケットから軽度の排膿を認めた。同部の頰側歯槽部に軽度の圧痛を認めた（図1）。

画像所見：デンタルX線写真では半年前の撮影時と著変なく、下顎右側第一大臼歯は浮遊歯状態で周囲に骨硬化像を認めた（図2）。パノラマX線写真では下顎右側第一大臼歯周囲の骨透過像は歯槽部に局限していた（図3）。

臨床診断：慢性歯槽骨炎（下顎右側第一大臼歯）

処置および経過（図4）：歯槽骨炎に対してアモキシシリン（750 mg/日，3×）の投与を開始し、かかりつけの内科に血圧のコントロールを依頼した。初診時施行できなかった採血検査を2日後に同科で施行したところ、白血球数5300/μL，CRP陰性であったが、

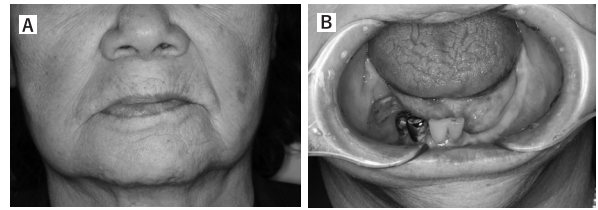


図1 再受診時の顔貌写真（A），口腔内写真（B）

A：顔貌左右対称で、皮膚の発赤、圧痛や知覚障害を認めなかった。
B：下顎右側第一大臼歯はC4で、周囲歯肉は軽度の発赤と軽度の打診痛を認め、動揺度は3度、歯周ポケットから軽度の排膿と同部の歯槽部に軽度の圧痛が認められた。

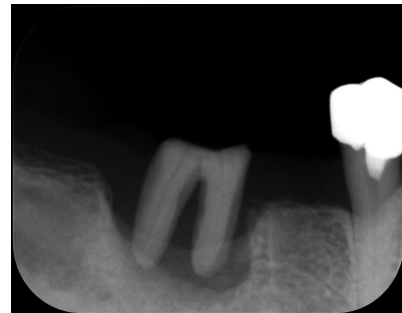


図2 デンタルX線写真（再受診時）

再受診時、下顎右側第一大臼歯の歯髄は失活し浮遊歯状態で周囲に骨硬化像を認めた。

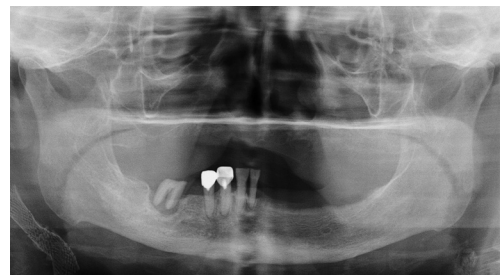


図3 パノラマX線写真

下顎右側第一大臼歯周囲の骨透過像は歯槽部に局限している。

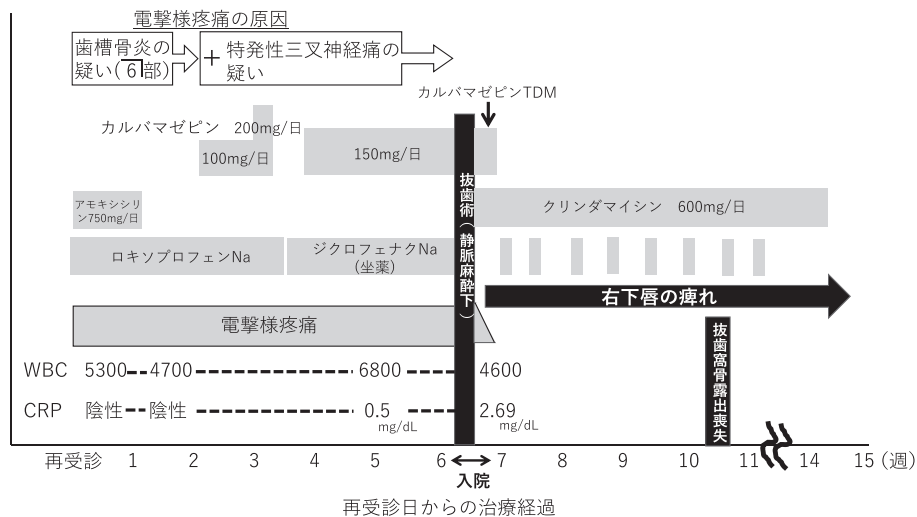


図4 本症例の治療経過



図5 術中写真

術中、下顎管との交通は認めなかったが根尖部の舌側骨に一部茶色に変色した骨病変が認められた。



図6 口腔内写真(抜歯後7週目)

下顎右側第一大臼歯抜歯窩の骨露出は、抜歯後4週で消失し上皮化した。

電撃様の疼痛は軽快傾向を示さず、頓服のロキソプロフェンナトリウムも無効であった。再診時、口腔内診査で下顎右側第一大臼歯の打診時の痛みと夜間帯の強い痛みとは性状が全く異なることが分かった。そこで痛みの性状を再度確認したところ、右側のみに限局した求心性の発作性の激痛であり、それが耳前部や頭部にまで波及することが判明した。痛みは夜間帯の主に就寝時に起こるが、痛みが誘発される際の洗面、食事、嚥下などの特定の行為は不明であった。また右オトガイ孔部周囲の触診で、電撃様の痛みが誘発された。以上の所見から、下顎右側第一大臼歯の歯槽骨炎に特発性の三叉神経痛(第Ⅲ枝)が併発していることが疑われたため、カルバマゼピンを100 mg/日から投与開始した。6日後の再診時、痛みは変わらずカルバマゼピンの効果を認めなかったため、200 mgに増量したが服用2日目に嘔吐し、以後服用を中断した。ロキソプロフェンナトリウムを長期間、頻回に継続服用していたため、鎮痛薬をジクロフェナクナトリウム坐薬に換えるよう指示し、カルバマゼピンを150 mgで再開したが消化器症状は出現しなかった。以後も、電撃様疼痛の軽快傾向は認めず、夫からは受診のたびに、夜中に救急車を呼ぼうと思う程の痛みであったと訴えられた。服薬全般に関して、多くの薬物を指示通りに服薬してい

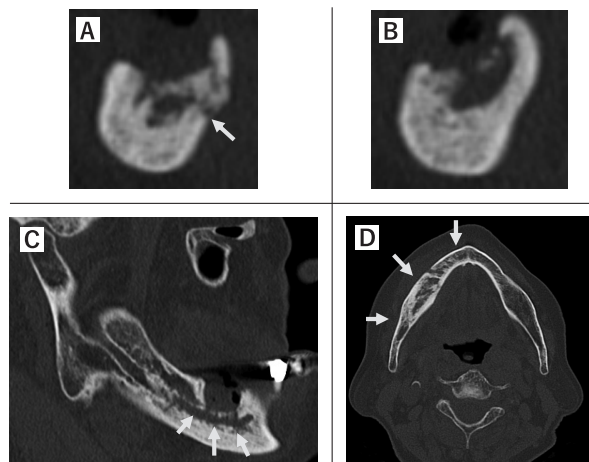


図7 CT写真(術後2日目)

下顎右側第一大臼歯抜歯窩(A, B)のAには舌側皮質骨の一部に断裂像と骨の粗造化(矢印)を認めた。Cは抜歯窩と下顎管の近接(矢印)、Dは広範な骨硬化(矢印)を認めた。

ない状況が判明し、疼痛コントロールが難しい要因としてコンプライアンスの不良が関係していることも考えられた。そこで下顎右側第一大臼歯の抜歯後、入院下に抜歯後の疼痛ならびに全身管理とカルバマゼピンの血中濃度測定を計画した。当院口腔内科に依頼し、アレンドロン酸、リマプロストアルファデクスは継続のまま、静脈麻酔下に下顎右側第一大臼歯の抜歯術を施行し、術後4日間の入院管理を行った。術中、下顎管との交通は認めなかったが、根尖部舌側の骨は茶色に変色し、周囲に軟組織を認めた。同部は表面が粗造で境界が不明瞭であり可動性はなかったため、肉芽様軟組織のみを摘出し閉鎖創として手術を終えた(図5)。術後、すぐにカルバマゼピンを150 mgで再開、電撃様疼痛は術後2日目から劇的に消失し、術後3日目にカルバマゼピンの血中濃度を測定し、4.6 $\mu\text{g/mL}$ と有効濃度域にあることを確認した。電撃様疼痛は消失したが、術中所見や後述する術後2日目の画像所見から今後、痛みが再燃する可能性も考えられた。カルバマゼピン継続下ではその変化が把握しにくいことがあるため、カルバマゼピンの服用を一旦中止した。しかし、その後疼痛は軽快傾向を示し、鎮痛薬の坐薬を不定期に1日1回使用するだけになり、術後6週には鎮痛薬は不要になった。創部は術後一部哆開し骨露出が認められたが、術後4週目までには肉芽組織で被覆され骨露出は消失し、その後の経過は良好で再燃は認めていない(図6)。術後2日目のCT画像では、下顎右側第一大臼歯部抜歯窩周囲軟組織と骨髓内に術後性的変化を認め、抜歯窩と下顎管の近接、同部舌側皮質骨の一部断裂と骨の粗造化、骨髓内に広範な硬化性変化を認めた(図7A～D)。そのため、術前

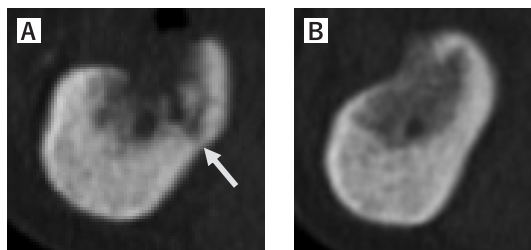


図8 CT写真(術後9か月目)

Aは下顎右側第一大臼歯部の骨病変の残存(矢印)とBは抜歯窩の骨新生を認めた。A, Bは図7のA, Bにそれぞれ対応している。

検査で腎機能の軽度低下が認められていたため、クリンダマイシンを約3か月間継続投与した^{1,2)}。以後CTで定期観察しているが、術後9か月目のCT所見で、骨病変は一部残存しているが拡大傾向はなく、抜歯窩は骨新生が認められ狭小化し、骨髄炎の進展傾向も認めていない(図8A, B)。

考 察

多くの反省点を有した本症例であるが、当初特発性三叉神経痛と考えられた症例が、結果的に本症例のように菌性の二次性三叉神経痛であった症例は少なくないと思われたが、文献的に検索すると少数の報告しか認めなかった。そのなかで植松ら³⁾は、最初、特発性三叉神経痛と診断された86症例を再検討した結果、口腔に痛みがある症候性の割合は20%から38%に増加したと報告している。笹野ら⁴⁾は、神経内科で特発性三叉神経痛と診断されテグレトールが奏効しなかった症例に対し、下顎右側智歯の菌周ポケット測定時に発作性の疼痛が出現したため同歯を抜去することで疼痛が消失した症例と、下唇の運動時に発作性の電撃様疼痛が誘発される症例に対し、下顎右側智歯の根尖病巣が下顎管に近接していたため、同歯の抜去により疼痛の消失が得られた2症例を報告している。これらはいずれも、抜歯前に患歯の周囲に診断的局所麻酔を施すことで疼痛が消失することを確認してから抜歯が施行された。このように特定の行為時に発作性の痛みが誘発される場合には、原因の可能性のある部位への診断的局所麻酔は極めて有効な手段になると思われる。しかし、本症例は痛みが誘発される特定の行為は認められなかったためこのような診査は行わなかったが、再診時に右オトガイ孔部にバレーの圧痛が認められたため、診断的局所麻酔を施行することは可能であったと思われる。

一般に二次性三叉神経痛では、特発性三叉神経痛に比べ発作性の疼痛は軽度で持続時間が長く、痛みが完全に消失することはなく、誘発帯も存在しないとされる⁵⁾一方で、痛みの性状から両者を区別することは困難であるとする報

告⁶⁾も多い。またカルバマゼピンに対する反応も、特発性よりも奏効率は劣るものの著効を示す症例もあり、両者の判別には無効である⁷⁾。従って本症例のように、仮に痛みの性状が特発性三叉神経痛様であっても、症候性の三叉神経痛の可能性は否定できないため、歯科的原因探索は十分に行う必要がある。その際、口腔顎顔面領域のCT画像は有効な検査になるとされる³⁾。また、症候性三叉神経痛では歯科以外の原因、特に脳腫瘍などの場合も決してまれではないため⁸⁾、歯科的に原因が見当たらない場合には速やかに脳神経外科への対診が必要と思われる。

本症例の痛みの本体は、術前まで下顎右側第一大臼歯の慢性歯槽骨炎に特発性三叉神経痛が併発したと考えたが、抜歯を行った結果疼痛が消失したことから、最終的には下顎右側第一大臼歯の慢性歯槽骨炎が原因の二次性三叉神経痛であると考えられた。術中、術前に予測していなかった骨病変を抜歯窩舌側に認めた。同部は茶色に変色し表面が粗造で可動性なく境界が不明瞭であった。術前のCT画像はなく病変の進展範囲が不明であったことから、同部は削除せず手術を終了した。術直後のCTから、舌側皮質骨に病変の存在と広範な下顎骨骨髄炎が認められた。アレンドロン酸を長期内服していたことから、抜歯窩治癒不全からARONJ⁹⁾に移行する可能性も考えられ、まずは保存療法で対処することとした。クリンダマイシンの長期投与をしながら経過観察していると抜歯窩は術後4週で上皮化し、以後再燃傾向無く良好に経過した。また術後4～5か月毎に確認しているCT画像では、骨病変の残存は認められるが骨髄炎に変化なく、抜歯窩には骨新生が認められ狭小化が認められた。このように懸念していたARONJへの移行がなく骨性治癒過程が認められたことから、電撃様疼痛の原因は、下顎右側第一大臼歯の慢性歯槽骨炎と考えられた。

・本症例の反省点

第一に、特発性三叉神経痛の疑いと臨床診断した際や、遅くとも術前の段階で頭頸部CTの撮影を怠ったことである。痛みに対する対応におもに注意が向けられ、三叉神経痛を考慮した際の基本的対応⁴⁾が疎かになったことは大いに反省される。早期の段階からCT画像があれば右側下顎第一大臼歯部の病変と下顎管の近接や、骨病変の存在から、電撃様疼痛の原因は同部の病変で説明がつくため、早期に手術が行われ、カルバマゼピンの投与は行われなかったと思われる。また本症例のように、パノラマX線写真で読影可能な病巣範囲には限界があり、三叉神経痛が疑われた際にはたとえ単純写真だけの情報で十分と思われる症例に対してもCT検査は必須と考える。第二に、痛みに対する詳しい問診や診察が十分に行われなかったが、患者には躁鬱病の既往があり、意思疎通が困難であったことも疼痛の変化を把握するのが困難であった一因であったと思われる。第三に、再受診時に当科で血液検査が施行されなかったことも問題があった。当初は下顎右側第一大臼歯の菌性炎症

を疑ったのだから、炎症の指標である白血球数やCRPの確認は必要であった。これらに炎症の所見が全く認められないことがこの時点で分かれば、痛みの原因として三叉神経痛を早くから考える契機になっていたかもしれない。

最後に特発性三叉神経痛を疑った際に、脳外科的精査¹⁰⁾を行わなかった点に関してであるが、患者は3年前に右側の頸動脈狭窄症でステント術を施行されていた。以後手術を施行した脳外科で経過観察の際、毎年脳の画像検査を施行され問題がないとのことであったため行われなかった。なお、カルバマゼピンで効果がない状態が続く場合には対診する予定であったが、カルバマゼピンのコンプライアンスが問題になったため実際には行われなかった。

結 語

当初、特発性三叉神経痛を疑って疼痛管理を行ったが奏効せず、最終的には慢性歯槽骨炎の原因菌を抜去することで症状の改善が得られた二次性三叉神経痛の1例を経験したので報告した。

参 考 文 献

- 1) Koorbusch GF, Fotos P and Goll KT: Retrospective assessment of osteomyelitis. Etiology, demographics, risk factors, and management in 35 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 74: 149-154, 1992.
- 2) 杉野彰行, 椎葉正史, 武川寛樹, 横江秀隆, 鶴澤一弘, 丹沢秀樹. 千葉大学医学部附属病院歯科・顎・口腔外

科における慢性下顎骨骨髓炎症例の臨床統計的観察. *千葉医学*, 83: 47-51, 2007.

- 3) 植松 宏: 顎顔面痛の診断と治療－症候性三叉神経痛－: *歯科ジャーナル*, 18: 827-835, 1983.
- 4) 笹野高嗣 仲島一郎, 三條大助: 歯痛と三叉神経痛に関する診断学的研究. *日歯保誌*, 40: 6-10, 1997.
- 5) 福島孝徳: 三叉神経痛の治療－Microvascular decompression法による成績－. *Neurosurgery*, 2: 229-237, 1982.
- 6) 阪本博文, 土井理恵子, 小谷 勇, 中林 基, 丹治義之, 領家男: 三叉神経痛様疼痛を契機として脳腫瘍が診断された3例. *日口外誌*, 51: 59-62, 2005.
- 7) 佐藤 淳, 野谷健一, 上野尚雄, 近藤圭司, 斎藤 徹, 福田 博: 三叉神経痛の診断に有用な臨床所見の検討－特にカルバマゼピンの効果と疼痛誘発帯の意義について－. *口科誌*, 49: 33-38, 2000.
- 8) 黒岩善之, 山口滋紀, 平田和彦, 比嘉和夫, 田邊 豊, 林 基弘, 日本神経治療学会治療指針作成委員会: 標準的神経治療: 三叉神経痛. *神経治療*, 27: 105-132, 2010.
- 9) 米田俊之, 萩野 浩, 杉本利嗣, 太田博明, 高橋俊二, 宗圓 聡, 田口 明, 永田俊彦, 浦出雅裕, 芝原孝彦, 豊澤 悟: 骨吸収抑制薬関連顎骨壊死の病態と管理. 顎骨壊死検討委員会ポジションペーパー 2016.
- 10) 廣谷拓章, 千葉雅俊, 福井功政, 越後成志: 抜歯を契機として脳腫瘍が発見された症候性三叉神経痛の2例. *口科誌*, 60: 264-270, 2011.

CASE REPORT

A case of secondary trigeminal neuralgia with difficulty in ascertaining the cause of the electric shock-like pain

Kaoru Inamoto¹⁾, Sayuri Nakagawa¹⁾, Takae Matsushita¹⁾, Seitaro Nakazawa¹⁾, Kenichirou Sakata²⁾
Hiroyuki Hatou²⁾, Yutaka Watanabe¹⁾ and Yutaka Yamazaki¹⁾

ABSTRACT : We report a case of secondary trigeminal neuralgia caused by chronic alveolitis with difficulty in ascertaining the cause of the electric shock-like pain.

A female patient in her 80s presented with the complain of inability to eat due to pain. Four months prior, mandibular examination pending extraction of the right first molar, which was caused by chronic alveolitis, was interrupted due to a fall. She had a history of osteoporosis-related fractures, had been on alendronic acid for 4 years, and was planning a tooth extraction without a drug holiday. Furthermore, only mild inflammation was observed around the tooth. Antibiotics and nonsteroidal anti-inflammatory drugs were ineffective, and the C-reactive protein test was negative. The electric shock-like quality pain was along the right mandibular nerve region and idiopathic trigeminal neuralgia was suspected; therefore, carbamazepine administration was initiated. However, there was no evident effect and it was considered that there was poor compliance. Consequently, we planned inpatient treatment for pain following tooth extraction, general care, and therapeutic drug monitoring of carbamazepine. The imaging findings revealed osteosclerosis around the mandibular right first molar in a floating tooth state. During the operation, the entire lingual bone at the apex presented with a brown discoloration; nonetheless, only tooth extraction was performed.

Computed tomography (CT) performed 2 days after surgery revealed lesions in the lingual cortical bone of the extraction socket along with extensive osteomyelitis. The patient had been taking alendronic acid for a long time; hence, transition to anti-resorptive agent-related osteonecrosis of the jaw in the future was a cause of concern. Nonetheless, the lancinating pain was resolved by the third day following tooth extraction, and bone exposure in the extraction socket had disappeared after four weeks. Regular CT scans were taken and new bone formation was detected in the extraction socket.

Based on the favorable course after the operation, chronic alveolitis of the mandibular right first molar was considered as the cause for the electric shock-like pain.

Key Words : secondary trigeminal neuralgia, electric shock-like pain, chronic alveolitis, carbamazepine

¹⁾ Gerodontology, Department of Oral Health Science, Faculty of Dental Medicine and Graduate School of Dental Medicine, Hokkaido University (Prof. Yutaka Yamazaki), North 13, West 7, Kita-Ku, Sapporo, 060-8586, Japan

²⁾ Oral Diagnosis and Medicine, Department of Oral Pathobiological Science, Faculty of Dental Medicine and Graduate School of Dental Medicine, Hokkaido University (Prof. Yoshimasa Kitagawa), North 13, West 7, Kita-Ku, Sapporo, 060-8586, Japan