



HOKKAIDO UNIVERSITY

Title	三叉神経痛症状を呈した高齢者に発見された小脳橋角部の類上皮腫の2例
Author(s)	中川, 紗百合; 新井, 絵理; 松下, 貴恵 他
Citation	北海道歯学雑誌, 42, 70-75
Issue Date	2021-09-15
Doc URL	https://hdl.handle.net/2115/82763
Type	journal article
File Information	42_11.pdf



症例報告

三叉神経痛症状を呈した高齢者に発見された 小脳橋角部の類上皮腫の2例

中川紗百合¹⁾ 新井 絵理¹⁾ 松下 貴恵¹⁾ 山野 茂²⁾
松下 和裕³⁾ 渡邊 裕¹⁾ 山崎 裕¹⁾

抄 録：今回、舌痛や上顎の痛みを訴えて当科受診した高齢女性に対し、三叉神経痛を疑いカルバマゼピンを投与し、概ね痛みコントロールが得られた。そこで中枢性の原因精査のため脳神経外科に対診したところ、同科のMRIにて小脳橋角部の類上皮腫が認められた2症例を経験したので報告する。

症例1は81歳の女性。歯科治療後の左側下顎体部の間欠性の強い痛みを発症し、その後左側舌縁にもヒリヒリした痛みが出現した。前医で舌痛症と三叉神経痛との併発が疑われ、一旦症状は自然軽快したが、その後、舌痛は高度に強まり口内全体の灼熱感を伴ってきたため当科紹介受診した。症例2は79歳女性。口腔カンジダ症の治療後に、左側上顎結節部の電撃様疼痛を自覚したため当科紹介受診となった。

当科での精査では、2症例とも三叉神経痛が疑われたため、カルバマゼピンが開始され一時著効を示した。しかしすぐに再燃傾向を示したが、増量により痛みコントロールが可能になった。そこで中枢性の原因精査のため脳神経外科に対診した。両症例ともMR画像にて、小脳橋角部に類上皮腫が認められた。2症例とも現在の症状や高齢による手術のリスクを考え薬物療法が行われた。

キーワード：三叉神経痛、舌痛、小脳橋角部、類上皮腫、カルバマゼピン

緒 言

三叉神経痛の原因が脳腫瘍である頻度は約10%で、そのなかでは類上皮腫が一番多いとされている^{1,2)}。類上皮腫は胎生期遺残組織から発生する先天性の良性腫瘍で³⁾、類上皮腫による三叉神経痛は、血管圧迫による典型的三叉神経痛よりも若年で発症し、高齢女性での報告は稀である⁴⁾。今回、三叉神経痛症状を呈した高齢女性に対し、MRIでの原因精査を行ったところ、小脳橋角部に類上皮腫が認められた2症例を経験したので報告する。

症例1

患 者：81歳、女性

初診日：X年5月

主 訴：左側舌の痛み、口内全体の灼熱感

既往歴：なし

常用薬剤：なし

現病歴：X-3年5月、近医歯科にて、左側下顎第一大臼歯の近心根をヘミセクションし^{⑤⑥⑦}Br装着後から時々、左側の下顎骨体部に間欠性の強い痛みが出現した。その後、左側舌縁にもヒリヒリした痛みが出現したため、近医口腔外科を受診した。詳細は不明だが、同科にてスプリント治療が行われたものの症状の改善は認められなかった。その後、左側舌縁のヒリヒリした痛みは、朝方、夕方、就寝時に出現するようになったが、摂食時には自覚しなかった。一方、左側下顎骨体部の痛みは1日数回数秒間の電撃様疼痛になってきたため、X年3月当院口腔外科を受診した。パノラマX線写真では明らかな異常所見は認めなかった(図1)。CT画像では、左側下顎骨骨髓に著明な硬化性変化が下顎管周囲まで進展していたが、溶骨性変化はなく慢性下顎骨骨髓炎が示唆された(図2)。舌痛に関しては、舌に器質的異常を認めず摂食時に

¹⁾ 〒060-8586 札幌市北区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 歯科放射線学教室(箕輪 和行 教授)

³⁾ 〒060-8586 札幌市北区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 口腔顎顔面外科学教室(大廣 洋一 准教授)

三叉神経痛症状を呈した高齢者に発見された
小脳橋角部の類上皮腫の2例



図1 当科初診時のパノラマX線写真（症例1）
明らかな異常所見は認めない



図2 当科初診時のCT写真（症例1）
左側下顎骨体部に軽度の硬化性変化を認める

は痛みを自覚しないことから舌痛症が示唆された。左側下顎の電撃痛は三叉神経痛が疑われたが、その後発生しなくなったため特に処置は行われず経過観察となった。1か月後、舌の痛みが急に強まり、左側下顎大臼歯の痛みも伴うようになったため、同科再受診し舌痛症の精査目的でX年5月当科紹介受診した。

現 症：

口腔外所見：顔貌左右対称、顔色良好。三叉神経領域皮膚の知覚障害は認めなかった。顔面部に痛みのトリガーゾーンや、オトガイ孔部のバレーの圧痛点は認めなかった。開口障害も認めなかった。

口腔内所見：軽度の舌苔の付着以外、舌を含め口腔粘膜、左側下顎歯牙、歯周組織に明らかな器質的異常所見は認めなかった（図3）。

臨床診断：三叉神経痛（左側Ⅲ枝）の疑い

処置及び経過：口内全体に灼熱感を伴い舌の痛みを強く訴えたが、詳しく症状を確認すると、食事中には痛みは発生してなかった。痛みは不定期に数秒間発生し、舌の痛みと連動して左側下顎部にも発作性の強い痛みが発生していた。舌の痛みも三叉神経痛の一症状の可能性が考えられたため、カルバマゼピン100 mg/日か

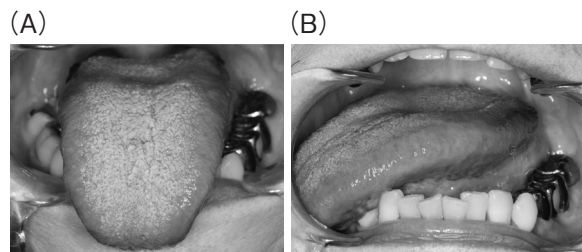


図3 当科初診時の口腔内写真（症例1）
（A）舌背 （B）左舌縁
軽度の舌苔の付着以外、明らかな器質的異常所見は認めない

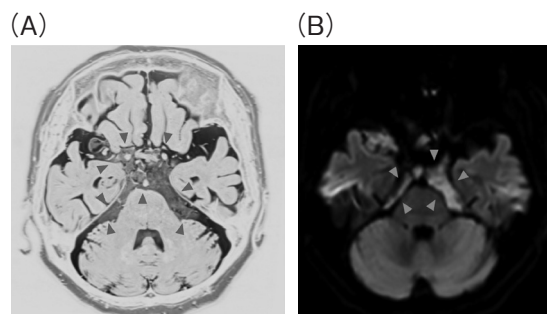


図4 MRI写真（症例1）
（A）Constructive interference in steady state（CISS）
画像：後頭蓋窩の脳幹前面から両側小脳橋角部、さらには右シルビウス裂にまで進展する腫瘍性病変が認められる
（B）拡散強調画像：小脳橋角部を中心としたスライスにおいて、両側小脳橋角部に高信号が認められる

ら投与開始した。翌日から電撃様の強い痛み及び灼熱感を伴う舌の間欠的痛みは軽快し痛みのVASは100から37まで低下し、痛みは食事開始時と歯磨き時のみに限局して発生するようになった。2週後の再診時、更なる痛みの軽減を期待して150 mg/日に増量した。これにより痛みはさらに低下したが、2週間後に再燃したため、200 mgに増量したところで痛みはほぼコントロールされた。そこで、三叉神経痛の原因探索のため、近医脳神経外科に対診した。同科で検査入院下に精査が行われ、MR画像で後頭蓋窩の脳幹前面から両側小脳橋角部、さらには右シルビウス裂にまで進展する腫瘍性病変が認められた。類上皮腫に特徴的とされる拡散強調画像で両側小脳橋角部に高信号が認められたため、類上皮腫が疑われた（図4）。同科では、カルバマゼピンにより痛みのコントロールがなされたため、痛みのコントロールがつかなくなった時に手術を検討することになり以後、同科で経過観察となった。1年半後、電話で病状を確認したところ、その後痛みは増強したが認知症を発症したため、手術は断念されカルバマゼピンと鎮痛薬の併用で対応されているが、疼痛コントロールは不良とのことであった。

症例 2

患 者：79歳，女性

初診日：X年2月

主 訴：左側上顎後方の激痛

既往歴：X-1年11月，心筋梗塞にてステント術施行

常用薬剤：抗血小板薬と降圧薬1種ずつ服用（薬剤名不明）

現病歴：X年1月，口腔粘膜のヒリヒリ感を自覚し近医歯科を受診したところ，口腔カンジダ症と診断され抗真菌薬が投与され，粘膜病変とヒリヒリ感は消失した。しかし，その後，左側上顎結節部に限局した電撃様疼痛を自覚したため当科紹介受診となった。

現 症：

口腔外所見：顔貌左右対称，顔色良好。三叉神経領域の皮膚に知覚障害は認めなかった。口唇，鼻部周囲に痛みのトリガーゾーンを認めず，眼窩下孔部のバレーの圧痛点は認めなかった。開口障害も認めなかった。

口腔内所見：上顎は無歯顎で左側上顎結節の頬側歯槽粘膜は軽度で発赤し，同部を冷水刺激すると規則的に発作性の激痛が誘発された。それとは別に同部周囲に持続的鈍痛と異常感が認められたが明らかな知覚異常ではなかった。義歯の適合状態や咬合状態に問題はなく，義歯装着下に咬合や下顎の側方運動をさせても痛みは誘発されなかった。その他の口腔内に異常所見は認めなかった（図5）。

画像所見：パノラマX線写真やCT画像では明らかな異常所見は認めなかった（図6）。

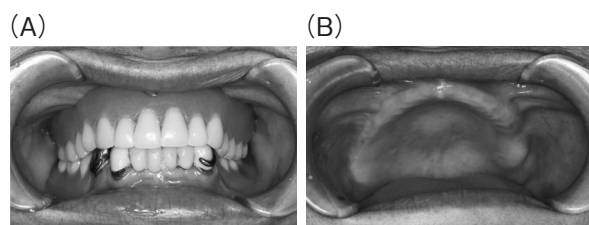


図5 当科初診時の口腔内写真（症例2）
（A）義歯装着時正面観 （B）上顎顎堤粘膜
左側上顎結節頬側歯槽粘膜に軽度の発赤を認める



図6 当科初診時のパノラマX線写真（症例2）
明らかな異常所見は認めない

臨床診断：三叉神経痛（左側Ⅱ枝）の疑い

処置及び経過：痛みの性状から三叉神経痛が疑われたため，カルバマゼピン100 mg/日から投与開始したところ，服用2日目から痛みは完全に消失した。しかし1か月後，冷水を飲んだ時に左側上顎歯槽部に限局して激痛ではないが鈍痛が間欠的に発症するようになった。しかし，自製内の痛みであったためカルバマゼピンは増量せずに経過を見ていたところ，痛みが増強してきたため150 mgに増量し痛みが軽快したところで，三叉神経痛の原因精査のため脳神経外科を紹介した。同科で撮影したMR画像にて左側小脳橋角部に類上皮腫を疑う腫瘍が認められた。同院にて入院精査し，現在の症状と手術によるリスクが相談され，まずは内服薬にての薬物療法を継続する方針になり以後，同科での経過観察となった。1年半後，電話にて病状を確認すると，その後しばらくカルバマゼピンで痛みのコントロールがされていたが，半年後には効かなくなり薬を数種類変更していき現在のラコサミド（ビムパット®錠，量は不明）になってから痛みは完全に消失したとのことであった。プレガバリン（リリカ錠®）も併用しているが，特に副作用なく体調は良好であった。

考 察

脳腫瘍が三叉神経痛の原因となる頻度は，1970年代までは5 %程度であったが，1990年代以降はMRIの普及による診断精度の向上などにより増加し，現在約10 %と考えられている^{5,6)}。小脳橋角部は，後頭蓋窩のなかで脳幹と小脳により形成される部位で，腫瘍の好発部位の1つである。このスペースは，脳幹から枝分かれする多数の脳神経が頭蓋外に出る通路であるため，この部位に腫瘍が発生すると高率に脳神経症状を発症することになる³⁾。類上皮腫は胎生期に迷入した表皮細胞から発生する先天性の良性腫瘍で，全脳腫瘍の1.3 %を占め⁷⁾，非常にゆっくり発育し小脳橋角部が好発部位のひとつである³⁾。小脳橋角部腫瘍全体の発生頻度では聴神経腫瘍が75 %，髄膜腫が8～10 %に対し，類上皮腫は5 %と低い⁸⁾が，三叉神経痛を生じる頻度では逆にこのなかで一番高いことが報告されている^{1,2)}。これは類上皮腫が周囲組織に癒着しながら発育することや²⁾，類上皮腫の内容物であるコレステリンの化学的刺激によって周囲組織に炎症を惹起しやすいため¹⁾と考えられている。一方，聴神経腫瘍では，腫瘍が三叉神経を圧迫して神経痛を生じる前に，難聴，耳鳴り，耳閉感，めまいなどの耳症状を呈するため耳鼻咽喉科を受診して聴神経腫瘍が発見される場合が多いとされている⁶⁾。類上皮腫の好発年齢は，動脈硬化した血管の圧迫による典型的三叉神経痛が60歳以降から発症頻度が増すのに対し，40歳代がピーク^{1,7)}でより若年例であることが特徴とされる⁴⁾。本症例は，

症例1の症状発現年齢は78歳、3年後の81歳で当科初診し、症例2はいずれも79歳であり、このような高齢での発症は稀と思われる。一般に脳腫瘍などによる症候性三叉神経痛は、典型的三叉神経痛症状に加えて片側三叉神経領域に感覚低下や異常感覚を認めることが多いとされる⁵⁾。しかし、類上皮腫においては80%が典型的三叉神経痛と紛らわしく、他覚的な神経症状は13%にしか認めなかったとする報告¹⁾があるように、典型的三叉神経痛との鑑別は困難とされる⁹⁾。本症例の症例1は、下顎の神経痛様の疼痛以外に感覚異常は認めなかったが、舌にも間欠性の疼痛があり摂食時には痛くなかったことから前医では、舌痛症と三叉神経痛の合併と考えていた。舌痛の性状が発作性の電撃様である場合は両者の鑑別は容易だが、ヒリヒリした痛みがある程度持続する場合には注意が必要になる。当科では、抗うつ薬が良く奏功し舌痛症と考えていた症例が、再燃寛解を何度も繰り返し最終的に典型的三叉神経痛と診断された症例を経験している¹⁰⁾。文献的にも当初舌痛症と診断された症例が、最終的に脳腫瘍¹¹⁾や脳動脈の圧迫が原因であった症例¹²⁾が報告されている。症例2では、左側上顎結節部の発作性の激痛以外に、左側上顎歯槽部に持続性の鈍痛と異常感を訴えていたが、明らかな知覚異常ではなく症状も軽度であったため、脳腫瘍の可能性を示唆する所見とは考えていなかった。しかし、症候性三叉神経痛に認められる異常感覚であった可能性があり今後注意していきたい。カルバマゼピンに対する反応は脳腫瘍による三叉神経痛症例では、一般に効果があっても1次的であり、1年以内に再燃するとされている¹³⁾が、なかには著効し痛みから解放される場合もある¹⁴⁾。本研究では2症例とも、カルバマゼピン100 mgの初回投与で著効を示し、その後すぐに再燃傾向を示したが増量により痛みのコントロールが概ね可能になった段階で、脳神経外科での精査を依頼した。当科初診から脳神経外科紹介受診までは2症例とも約2か月であったが、カルバマゼピンで痛みのコントロールに時間を要する場合もあり、今後はカルバマゼピンの効果が認められた時点で、すぐに脳神経外科へ受診させるべきと思われる。典型的三叉神経痛においても、カルバマゼピンは治療開始時には非常に有効であるが、効果は次第に薄れていき有害事象が起きやすくなることが報告されている¹⁵⁾。このようにカルバマゼピンに対する反応から脳腫瘍と典型的三叉神経痛を鑑別することは困難なため、カルバマゼピンで痛みが制御された場合にも、必ず脳神経外科への対診は必要と思われる¹⁴⁾。

類上皮腫は、MRIのT1強調画像、T2強調画像では脳脊髄液とほぼ等信号で、一般に造影効果もほとんど認めないが、拡散強調画像で著明な高信号を呈することが特徴とされる^{16, 17)}。従って術前診査のMRIで、拡散強調画像が高信号を呈する場合には類上皮腫が強く示唆される。今回経験した2症例も同様の所見により診断された。一般に類上皮

腫は正常構造物との癒着が強いため、全摘出が困難な症例が多く³⁾、被膜の一部でも取り残すと再発し顔面の神経障害性疼痛を引き起こす^{9, 18)}。従って高齢の場合には、一般に薬物による保存的治療が優先される⁹⁾とされ、本研究の2症例ともこれに準じて治療された。症例1では痛みのコントロールが困難になった場合には手術を検討する予定であったが、痛みのコントロールが不良になってきたころ、認知症を発症し手術は見送られ、現在、疼痛コントロールに悩まされている状況である。症例2はカルバマゼピンの効果が減弱し他剤に変更を繰り返したが、ラコサミドが奏効し現在痛みは消退している。しかし、いつまでこの状態が維持可能かは不安なところである。超高齢社会の進展のなかで、今後症例1のように認知症を併発する症例も増えていくことが予想される。そのため高齢者に対しては、健康寿命を考慮したうえで再発しても発育が緩慢な腫瘍であるため、治療方針の見直しも必要になると思われる。

結 語

三叉神経痛症状を呈した高齢女性に対し、MRIでの原因精査を行ったところ、小脳橋角部に類上皮腫が認められた2症例を経験したので報告した。

参 考 文 献

- 1) 浜田慎二, 浅原広澄, 福島孝徳: 脳腫瘍による三叉神経痛125例の検討. 麻酔. 37: 1002-1006, 1988.
- 2) 長谷川浩一, 近藤明恵, 絹田祐治, 田辺英紀, 川上雅久, 松浦伸樹, 沈 正樹, 齊木雅章: 小脳橋角部腫瘍により発症した三叉神経痛45例の検討—その発症機序—Neurol Surg. 23: 315-320, 1995.
- 3) 太田富雄: 脳神経外科学改訂11版. 1584-1590, 金芳堂, 京都, 2012.
- 4) Kobata H, Kondo A, Iwasaki K: Cerebellopontine angle epidermoids presenting with cranial nerve hyperactive dysfunction: pathogenesis and long-term surgical results in 30 patients. Neurosurgery 50: 276-285, 2002.
- 5) 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.
- 6) 浜田慎二, 福島孝徳, 神尾友和: 三叉神経痛を呈した聴神経腫瘍23例の報告. 耳鼻と臨. 37: 1123-1125, 1991.
- 7) Committee of brain Tumor Registry of Japan. Report of Brain Tumor Registry of Japan (1984-2000). Neurol Med Chir (Tokyo), 49 (Suppl): 1-12, 2009
- 8) 青木茂樹: よくわかる脳MRI. 118-137, 秀潤社, 東京, 1998.

- 9) 北原功雄, 白鳥寛明, 福田 直, 鈴木 遼, 横地智貴, 野間 昇, 今村佳樹, 岡田明子: 三叉神経痛をひきおこす小脳橋角部腫瘍(髄膜腫, 前庭神経鞘腫, 類上皮腫)の病型分類と治療. 慢性疼痛. 36: 99-103, 2017.
- 10) 中澤誠多朗, 前 壮功仁, 岩島佑希, 阿部貴恵, 北川善政, 山崎 裕: Pretrigeminal neuralgia (前三叉神経痛) が疑われた3例. 日口内誌(抄). 23: 137, 2017.
- 11) 立石 晃: 脳疾患のため顎口腔領域に諸症状を発現した4例. 口科誌. 53: 87-90, 2004.
- 12) 前 壮仁, 中澤誠多朗, 松下貴恵, 岡田和孝, 山崎 裕: 非典型的症状を呈した静脈圧迫による三叉神経痛の1例. 日歯心身. 31: 51-54, 2016.
- 13) Bullitt E, Tew JM and Boyd J: Intracranial tumors in patients with facial pain. J Neurosurg 64: 865-871, 1986.
- 14) 東拓一郎, 大吉達樹, 花谷亮典, 後藤雄一, 杉浦 剛, 有田和徳: 類上皮腫による三叉神経痛. 鹿児島医師会報. 12: 2-74, 2015.
- 15) 五島久陽, 鈴木倫保: 三叉神経痛のレシピ. 臨床と研究. 97: 161-166, 2020.
- 16) 鎌田恭輔: 後頭蓋窩類上皮腫手術のポイント～微小解剖の理解とモニタリング～. 脳神経外科速報. 25: 802-809, 2015.
- 17) 上谷浩之, 北島美香, 武笠晃丈: 脳腫瘍診断における拡散強調像. 臨床画像. 35: 1031-1041, 2019.
- 18) 佐々木裕亮: 頭蓋鄭外科「診断・アプローチ」. 脳神経外科速報. 30: 763-767, 2020.

CASE REPORT

Two cases of cerebellopontine angle epidermoid tumors in elderly with trigeminal neuralgia

Sayuri Nakagawa¹⁾, Eri Arai¹⁾, Takae Matsushita¹⁾, Shigeru Yamano²⁾, Kazuhiro Matsushita³⁾
Yutaka Watanabe¹⁾ and Yutaka Yamazaki¹⁾

ABSTRACT : An elderly woman presented to our department complaining of tongue or maxillary pain. Trigeminal neuralgia was suspected and carbamazepine was administered. The pain was generally controlled. Herein, we report two cases in which epidermoid tumors of the cerebellopontine angle were detected using magnetic resonance imaging following consultation with neurosurgery to investigate the central cause.

Case 1. An 81-year-old woman developed intense intermittent pain in the left mandibular body after dental treatment, followed by tingling pain in the left tongue margin. Her previous physician suspected a combination of glossodynia and trigeminal neuralgia, but her symptoms improved spontaneously. However, subsequently, the tongue pain became extremely severe and was accompanied by a burning sensation in the entire mouth. Therefore, the patient was referred to our department.

Case 2. A 79-year-old woman was treated for oral candidiasis. She noticed shooting pain in the left maxillary tuberosity and was hence referred to our department.

Upon close examination at our department, trigeminal neuralgia was suspected in both cases. Hence, carbamazepine was prescribed, which showed a temporary effect. Although the condition showed a tendency of relapsing shortly, the pain could be controlled by increasing carbamazepine dose. Hence, we consulted neurosurgery to investigate the central cause.

In both cases, magnetic resonance images showed epithelioid tumors in the cerebellopontine angle. Both patients were elderly and were treated with pharmacotherapy considering their current symptoms and risk of surgery.

Key Words : Trigeminal neuralgia, Tongue pain, Cerebellopontine angle, Epithelioid tumor, Carbamazepine

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

²⁾ Radiology, Department of Pathobiological Science, Faculty of Dental Medicine, Hokkaido University (Chief: Prof. Kazuyuki Minowa), North 13, West 7, Kita-ku, Sapporo, 060-8586, Japan.

³⁾ Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Pathobiological Science, Faculty of Dental Medicine, Hokkaido University (Chief: Assoc. Prof. Yoichi Ohira), North 13, West 7, Kita-ku, Sapporo, 060-8586, Japan.