突発性片側性舌下神経麻痺による舌半側萎縮の1例

道念正樹・尾田充孝・斎藤滋夫
小林一三・戸塚靖則

A case of unilateral tongue atrophy caused by idiopathic hypoglossal nerve palsy

Masaki DONEN・Mitsutaka ODA・Shigeo SAITO
Ichizo KOBAYASHI・Yasunori TOTSUKA

Abstract: A case of unilateral tongue atrophy caused by idiopathic hypoglossal nerve palsy is presented.

A 38-year-old woman noticed atrophy in the left side of the tongue and visited Hokkaido University Dental Hospital. The face was symmetrical, and there was neither facial nerve weakness nor muscle atrophy. The movement of the neck and brachium was not restricted. She had fasciculation and atrophy in the left side of the tongue. When the tongue protruded, it deviated towards the left. The shape and movement of the soft palate were normal. MRI examination revealed atrophy in the left side of the internal muscles of the tongue. The cranial nerves other than the twelfth nerve were normal, and there were no signs of systemic neurological abnormalities. Unilateral tongue atrophy caused by idiopathic hypoglossal nerve palsy was diagnosed.

Key words: tongue (舌), atrophy (萎縮), idiopathic hypoglossal nerve palsy (突発性舌下神経麻痺)

緒 言

舌の半側萎縮は比較的まれな病態で、舌下神経麻痺に伴うとされている¹⁾。舌下神経麻痺は、それが単独で出現することはまれで、ほとんどが舌咽神経、迷走神経ならびに副神経の麻痺と合併して出現する、いわゆる後位第4脳神経障害として生じるといわれている²⁾。原因とされている病変には、感染、外傷、血管による圧迫、突発性内頸動脈解離などの他、転移性脳腫瘍など生命にかかわる疾患もあり、原因の検索はきわめて重要である。今回われわれは、舌下神経にのみ症状が発現し、かつさまざまな検索にもかかわらず、現在にいたるまでその原因を明らかにしえない突発性片側性舌下神経麻痺による舌半側萎縮の1例を経験したので、その概要について報告する。

症 例

患 者: 38歳, 女性。

初 診: 1999年10月■。

主 訴: 舌半側の萎縮。

既往歴: 特記事項なし。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 1997年9月頃、左舌側縁の痙攣を自覚した。痙攣は数分間続いたが、疼痛はなくまた味覚異常もなかった。以後、症状なく経過していたが、約2年後の1999年9月に左舌側縁に違和感を自覚した。鏡を見て舌左半側の萎縮に気づき、近医脳神経外科を受診した。同院でMRI検査を行ったが、特に異常は認められなかった。左舌側縁の違和感のみで疼痛等がないことから放置していたが、心配になり、同年10月■、北海道大学歯学部附属病院口腔外科を受診した。

現 症:

口腔外所見: 顔貌左右対称で顔面皮膚に知覚異常や運動障害を認めなかった。頸部や上肢の動きも正常であった。

口腔内所見: 舌の左半側は舌背面積比で健側の約2/3に萎縮しており、常時微細な痙攣が認められた。舌粘膜、舌

北海道大学大学院歯学研究科口腔病態学講座口腔顎顔面外科学
(主任: 戸塚靖則教授)

Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Oral
Patho-biological Science, Graduate School of Dental
Medicine, Hokkaido University
(Chief: Prof. Yasunori Totsuka)

受付日: 平成12年12月19日

写真1 口腔内写真

舌左半側の萎縮を認め、左側への偏位を認める。

写真3 MRI T1強調像

舌下神経管およびその周囲に異常所見を認めない。

写真2 MRI T2強調像

左側内舌筋の萎縮と脂肪変性を認める。

乳頭の萎縮は認められず、舌の知覚異常や味覚障害も認められなかった。舌を前方へ突出させると左側へ偏位した(写真1)。軟口蓋は左右対称で動きも正常であった。

臨床診断：舌半側萎縮症。

処置および経過：1999年10月■にMRI撮影を施行した。T2強調像において左側内舌筋の萎縮と脂肪変性を認めた(写真2)。T1強調像で、舌下神経管やその周囲に異常所見を認めなかった(写真3)。

中枢性の原因を疑い、本学医学部附属病院神経内科に紹介した。神経内科的にも左側舌下神経以外の脳神経系に異常は認められず、また全身性の神経疾患を疑わせる所見も認められないことから、突発性片側性舌下神経麻痺による舌半側萎縮と診断され、以後経過観察となった。症状自覚から約1年6か月を経過した現在、症状に変化なく経過観察中である。

考 察

舌の半側萎縮症は比較的にまれなもので、延髄の舌下神経核からその末梢までの範囲に生じるさまざまな疾患に起因する舌下神経麻痺の随伴症状とされている¹⁾。舌下神経の半側麻痺については、そのほとんどが舌咽神経、迷走神経ならびに副神経の麻痺と合併して出現する、いわゆる後位第4脳神経障害が多く、それが単独で出現することはまれといわれている³⁾。その原因としては、転移性脳腫瘍、感染、外傷、血管による圧迫、突発性内頸動脈解離などが報告されている^{1, 3-6)}。

本症例では肩部および頸部に運動障害を認めず、軟口蓋の動きも正常であった。また、舌の味覚障害も認められず、舌下神経の麻痺のみが認められた。さらに、画像診断においても、頭蓋内に脳腫瘍等の病変を認めず、舌下神経管付近にも異常所見を認めなかった。舌下神経麻痺の原因として挙げられている転移性脳腫瘍においては、ほとんどが両側性であり、また極く初期の病変を除けば、画像診断が可能である。同様に、血管による圧迫も画像診断が可能である。なお、画像検査の際に、できるだけ薄いスライスで延髄

表1 過去の報告例

	年齢	性別	回復までの期間
1992 Sugama S.	8	男	12週
1994 Lee S.S.	81	女	4週
1998 Combarros O.	44	女	2週
	69	男	3か月
	44	女	4か月
	20	男	5か月

のMRIを施行することが勧められている¹⁾。外傷についても、舌下神経麻痺が単独で出現することはまれで、またその既往から比較的容易に鑑別しることが多い。突発性動脈解離についてもその特徴的な症状から鑑別は比較的容易である²⁾。

その他に鑑別すべきものとして感染症による麻痺があり、これまでにEBウイルスによる伝染性単核症やインフルエンザウイルスによる神経炎が報告されている^{4, 7-11)}。これらに特徴的なことは、麻痺症状に先行して頭痛、喉の痛み、発熱、倦怠感、リンパ節の腫脹が認められることである。これらの感染症状の発現から神経麻痺発現までの期間は症例により異なるが、これまでの報告では数日から3週間前後のものが多く、長くても50日頃までには神経麻痺症状が発現している。なお、これら感染症に起因する麻痺については、特別な治療を行うことなく、全例が6か月以内に回復を認めている。本症例においては、発症から受診までの期間が約2年と長かったことから、血清学的検索は行っていないが、病歴からみて感染症が原因である可能性はきわめて低いと思われる。

過去の報告の中に原因不明の症例が6例あり(表1)、いわゆる突発性舌下神経麻痺として報告されている¹²⁻¹⁴⁾。年齢は8歳から81歳にわたり平均44.3歳で、性別は男性3例、女性3例であった。6例全例で回復しており、そのうち5例では特別な治療を行っておらず、残り1例でビタミン剤の投与のみが行われている。回復までの期間は2週から長い症例でも20週で、平均11.0週であった。これらの発症機序として虚血説が考えられている^{12, 15)}。すなわち神経栄養血管の障害による血液循環障害の結果、麻痺が引き起こされるとするものである。しかしながら、あくまで推測にすぎず、仮に虚血により麻痺がおこるとしても、神経栄養血管の障害つまり血管の攣縮を起こす原因は不明である。

本症例において、舌下神経麻痺の原因を推測する上で重要と考えられる症状として、初診時、舌に常時微細な痙攣、すなわち舌筋の線維束攣縮が認められたことがあげられ

る。筋の線維束攣縮は、安静時に運動ニューロンの自発放電によって筋線維束が不随意的に収縮する現象で、これがみられることは下位運動ニューロンの障害を意味している^{16, 17)}。舌筋の線維束攣縮は、延髄における舌下神経核障害のときの重要な徴候であり、また筋萎縮性側索硬化症や脊髄性進行性筋萎縮症など、慢性経過をとる脊髄前角細胞の疾患の際に認められるとされているが^{16, 18)}、本症例においては現在にいたるまでこれらの疾患を疑わせる症状や所見は認められていない。なお、舌筋の線維束攣縮は疲労時や末梢神経の急性炎症の際にもみられることが知られているが、これらの場合は筋の萎縮を生じることはないとされている¹⁶⁾。

これまで述べてきたように、本症例は舌下神経麻痺の原因や機序に関して、これまでに報告されているもののいずれにもあてはまらず、なお不明のままである。今後も引き続き経過を観察する予定である。

結 語

今回われわれは、舌下神経にのみ症状が発現し、かつさまざまな検索にもかかわらず現在にいたるまでその原因を明らかにしえない突発性片側性舌下神経麻痺による舌半側萎縮の1例について報告した。

引 用 文 献

- 1) 和泉唯信, 宇高不可思, 他: 一側舌萎縮. 神経内科 49: 236-237 1998.
- 2) Keane, J.R.: Twelfth-Nerve Palsy. Analysis of 100 Cases. Arch Neurol 53: 561-566 1996.
- 3) 高橋 昭: 脳神経障害. 織田敏次他編; 内科セミナー PN 1・神経学的診断法. 第1版, 永井書店, 大阪, 1979, 78-79頁.
- 4) Afifi, A.K., Rifa, Z.H., et al.: Isolated, reversible, hypoglossal nerve palsy. Arch Neurol 41: 1218 1984.
- 5) 塩澤全司, 小池譲治, 他: 舌下神経孔部での拡張した emissary vein の圧迫による一側舌萎縮. 神経内科 44: 88-90 1996.
- 6) 森若文雄, 田代邦雄, 他: 片側舌萎縮. 神経内科 49: 132-133 1998.
- 7) Philip, A. and DeSimone, M.D.: Hypoglossal nerve palsy infectious mononucleosis. Neurology 28: 844-845 1978.
- 8) Sibert, J.R.: Hypoglossal nerve palsy complicating a case of infectious mononucleosis. Post graduate Medical Journal 48: 691-692 1972.
- 9) Parano, E., Giuffrida, S., et al.: Reversible palsy of the hypoglossal nerve complicating infectious mononucleosis in a young child. Neuro-pediatrics 29: 46-47 1998.
- 10) Jacob, K., Robert, H., et al.: Isolated hypoglossal nerve paralysis following influenza

- vaccination. *Am J Dis Child* 130: 82-83 1976.
- 11) Wright, G.D.S. and Lee, K.D.: An isolated right hypoglossal nerve palsy in association with infectious mononucleosis. *Postgraduate Medical Journal* 56: 185-186 1980.
- 12) Combarros, O. and Alvarez de Arcaya.: Isolated unilateral hypoglossal nerve palsy nine cases. *J Neurol* 245: 98-100 1998.
- 13) Sugama, S., Matsunaga, T., et al.: Transient, unilateral, isolated hypoglossal nerve palsy. *Brain dev* 14: 122-123 1992.
- 14) Lee, S.S., Wang, J.L., et al.: Transient unilateral hypoglossal nerve palsy: a case report. *clinical neuro* 96: 148-151 1994.
- 15) 若杉文吉, 塩谷正弘: 診断と治療. 野村恭也, 本庄巖: 顔面神経麻痺. 第1版, 金原出版, 東京, 1989, 139-148頁.
- 16) 斉藤佳雄, 田崎義昭: ベッドサイドの神経の視かた. 第14版, 南山堂, 東京, 1991, 33頁.
- 17) 吉利 和: 神経学的検査. 塚越 廣: 新内科学大系 8 A. 第1版, 中山書店, 東京, 1976, 191-192頁.
- 18) 平山恵三: 筋萎縮の視かた. 後藤幾生: 臨床神経内科学. 第3版, 南山堂, 東京, 1986, 59-60頁.
-