
臨床指導講演

見逃さないでその症状！

—悪性病変の可能性はありませんか？—

菅原千恵子, 河野 文昭

キーワード：Numb chin syndrome, trismus, macroglossia, amyloidosis, swelling

Orofacial Symptoms as the Initial Manifestations of Malignancy: Case Reports and Comments

Chieko SUGAWARA, Fumiaki KAWANO

Abstract : Patients with orofacial symptoms caused by malignant diseases, which should be treated by medical doctors, sometimes visit dental clinics during the initial consultation. The delay of getting an accurate diagnosis will lead to poor prognosis including death of patients. Therefore, dentists should be able to notice some symptoms related to malignant diseases. The signs and symptoms commonly associated with such patients are as follows.

1) Numb chin syndrome, 2) Swelling of palate and neck without pain, 3) Trismus, and 4) Macroglossia. In this article, we report the process from the initial visit until the accurate diagnosis of the patient with such symptoms, and present some comments about the signs and symptoms that may give us clues of malignancy.

I. はじめに

患者の主訴は一見歯科領域でありながら、実は他科の治療が必要な悪性疾患が原因で生じている症状の場合がある。日々の診察のなかで、生命予後にかかわる重大疾患を有する患者が、初診科として歯科を受診することを少なからず経験する。そのまま、気づかれずに確定診断までにいたずらに時間を費やすと、患者から原因疾患の治療の機会を奪ってしまう結果になる。われわれ歯科医は、このような重大疾患を有する患者に遭遇する可能性を十分考慮しつつ、日常の診察を行う必要がある。

そこで、著者がこれまで画像診断に関わった症例のなかから、歯科受診を契機として発見された他科領域の悪性疾患症例を、患者の主訴に着目し、各種検査や臨床経過とともに供覧し、考察を加えた。

II. “しびれる” Numb Chin Syndrome

1. 症例：60歳、女性

【主 訴】左側下顎部・歯肉・唇のしびれ。

【既往歴】特記事項なし。

【経 過】下顎両側犬歯部にインプラントを2本埋入した約3か月後から、下顎左側にしびれを自覚するようになったため、埋入術を施行した歯科医から紹介され本院を受診した。パノラマエックス線写真では、下顎左側臼歯部の骨梁構造が右側に比較し不明瞭であるが、病的かどうかは判定できないため、コンピューター断層撮影法(CT)と核磁気共鳴画像(MRI)が追加された。これらの検査で下顎左側臼歯部骨体領域の骨梁の消失ならびに同部舌側皮質骨の断裂を認め、その部に沿うように下顎骨舌側に軟

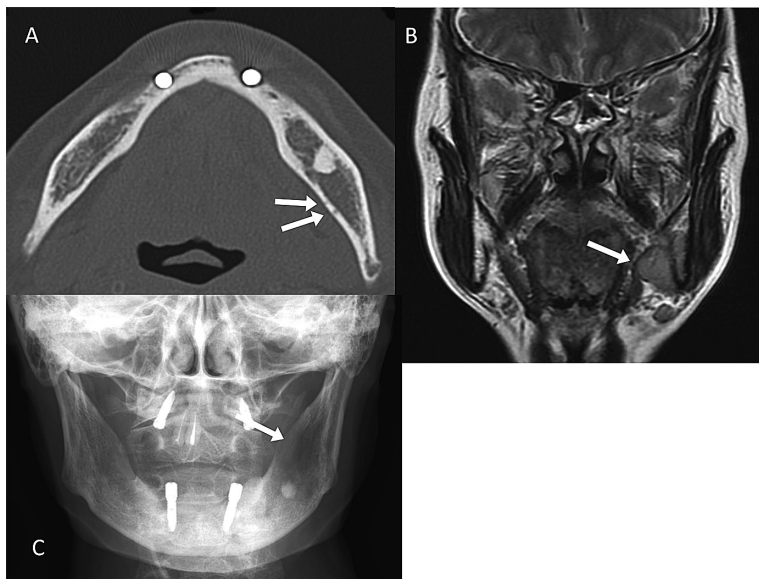


図1 60歳女性（インプラント埋入後の左下唇のしびれ）

A（CT画像）：下顎左側臼歯部の舌側皮質骨の断裂（矢印）と骨体部の海綿骨骨梁の消失がみられる。

B（MRI画像）：CTで骨の断裂を認めた部位に沿うように下顎骨舌側に腫瘍が存在する。

C（2か月後の頭部P-A）：左側下顎臼歯部の骨梁消失が進行し、エックス線透過性が亢進している。

組織病変が観察された（図1 A B）。造血器由来の腫瘍の存在を疑い、患者に生検術をすすめたが、抗生物質投与による一時的な症状軽減があり加療を希望せず中断となった。しかし、その2か月後に症状が再燃した。この時点の頭部P-A写真では下顎左側臼歯部の骨梁異常が進行していた（図1 C）。そこで、生検術が施行され悪性リンパ腫と診断された。

全身検索目的で行われたPET/CT検査では下顎骨以外には病変を疑う部位は観察されなかった。血液内科に紹介され、入院加療となった。

【診断】悪性リンパ腫 Stage II A

2. 症例：70歳、男性

【主訴】右側下唇のしびれ。

【既往歴】貧血・前立腺肥大・大腸ポリープ切除術（3年前）・腸閉塞にて入院歴あり。

【経過】本院初診の2週間ほど前から右側下唇付近にしびれが生じたため、近医歯科を經由し本院を受診した。口腔内には特記異常所見はみられない。パノラマエックス線写真（図2）にて右側下顎孔付近にエックス線透過性領域がみられた。CT検査においても右側下顎孔付近に骨吸収像が認められ（図3 A）、転移性腫瘍の可能性が考えられた。血液検査ではALP 2,677 u/l（基準値60-200）と異常高値を示し骨転移や骨疾患を疑った。大腸ポリープや前立腺肥大の既往があることから腫瘍マーカー検査が追加され、PSA 529.04 ng/ml（基準値<2.5）を示した。骨シンチグラフィでは多発性異常集積が認められ（図3 B）、前立腺癌による多発骨転移と診断され、泌尿器科へ紹介となった。

【診断】前立腺癌、多発骨転移（下顎骨を含む）

考 察

下唇やオトガイ部周辺の知覚鈍麻はNumb chin syndromeとよばれ、医学領域においては悪性腫瘍の重要な徴候の一つとして教育されている¹⁾。原因としては三叉神経走行領域において、神経を圧迫、浸潤、浮腫、切断や破壊などの変化を生じるような病態により発現する。中枢性に生じる場合もあるが、末梢性の原因としては転移を含めた悪性腫瘍、造血器由来の悪性腫瘍、炎症・外傷などが考えられる。歯科領域においては、知覚鈍麻は多くの場合下顎骨骨髓炎の波及や、埋伏智歯の抜歯やインプラント埋入にともなう偶発症の頻度が高く、悪性疾患の徴候としてはあまり捉えられていないのが現状である。しかし、文献によって差はあるが、Numb chin syndromeのうち2割から5割程度は悪性腫瘍に起因して発現^{2,3)}、また悪性病変の確定診断を得る前に47%の患者が初発症状として訴えているとの報告がある⁴⁾。さらに、この徴候が発現してからの予後は不良で、症状発現2ヶ月以内の死亡は36%、1年以内の死亡は79%という報告があり⁵⁾、可及的速やかに確定診断をすべきである。

下顎骨原発の悪性腫瘍以外で考慮すべきは、転移性腫瘍と造血器由来の悪性疾患である。口腔領域に発現する悪性腫瘍のうち、転移性のもは約1%から8%であり⁶⁾、下顎臼歯部領域がその30%を占めるとい⁷⁾。原発病変としては、乳癌、肺癌、腎癌、前立腺癌、肝癌、甲状腺癌が報告されている^{8,9)}。また造血器由来の悪性腫瘍（骨髓腫・リンパ腫・白血病など）が顎骨骨髓に発生することも忘れてはならない^{10,11)}。

最近は特にPET/CT検査の普及により、以前に比べて悪性病変の発見は格段に早くなっているが、どんなに検査が進歩しても、検査は臨床医が患者の何らかの異常を疑って初めてオーダーされるものであり、臨床医の判断が重要になる。下唇やオトガイ領域のしびれを主訴に



図2 70歳男性 (突然の右下唇のしびれ)
初診時パノラマエックス線写真：右側下顎管走行付近で、気道に重積した部位にエックス線透過性領域 (矢印) がみられる。

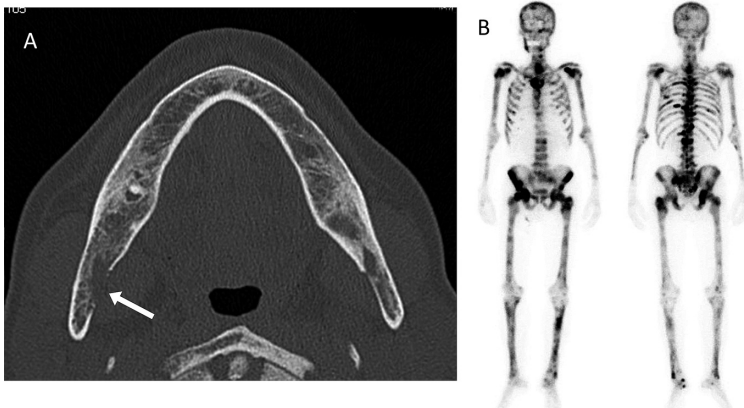


図3 図2と同症例
A (CT画像)：右側下顎孔下方の骨破壊が認められる。
B (骨シンチグラフィ)：全身の骨 (頭蓋骨・下顎骨・上腕骨・胸骨・椎骨・大腿骨・脛骨ほか) に結節性あるいは棒状に強い集積がみられる。

歯科を受診する患者の中で、炎症性あるいは歯科処置に伴うような明確な原因を特定できない場合、もしくはそれらによってもなお裏付けられない経過をたどる場合には、悪性疾患の可能性を考慮し、すみやかに専門医に診断をゆだねるべきである。Numb chin syndromeの要因を表1に示す (表1)。

頭頸部周囲で Numb chin syndrome を引き起こす悪性病変の存在は、病巣が広範囲に進展していれば、パノラマエックス線検査で、三叉神経走行領域に対応する溶骨性変化として、翼口蓋窩や下顎管周囲の骨破壊として確認されることもある。しかし、病巣が小さい場合にはこの限りでなくパノラマエックス線検査のみでは確認できないが、歯科関連の原因精査のためにはパノラマエックス線写真を慎重に読影することは必須であり、さらに

表1 Numb Chin Syndrome の原因

悪性腫瘍	造血器腫瘍	悪性リンパ腫・白血病・骨髄腫
	転移性腫瘍	乳がん・肺がん・前立腺がん・消化器がん その他
	原発性腫瘍	頭頸部癌
全身疾患	アミロイドーシス・鎌形赤血球症・梅毒・糖尿病血行性・サルコイドーシス・動静脈瘤	
歯科領域	炎症	歯性膿瘍・骨髄炎
	良性腫瘍	エナメル上皮腫など
	外傷	手術手技に伴うもの・顔面外傷

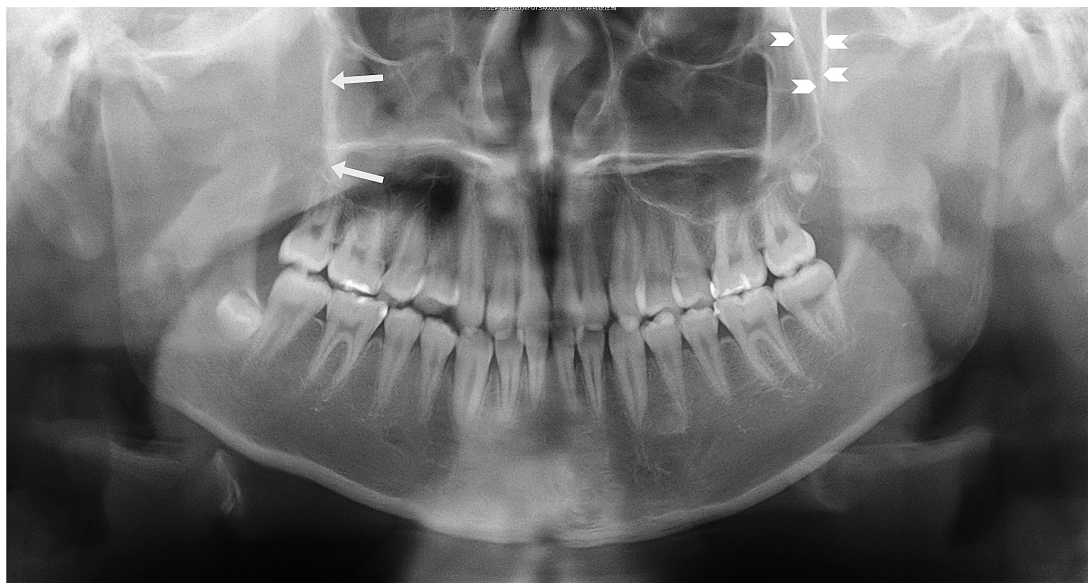


図4 12歳男児（開口障害と鼻閉）初診時パノラマエックス線写真
右側上顎洞後壁が破壊され翼口蓋窩が確認できない。（左側翼口蓋窩の領域を矢頭で表示）右側のパノラマ無名線が肥厚（矢印）しており上顎洞内のエックス線透過性が低下している。

CT検査により頭蓋内から下顎骨周囲におよぶ神経走行領域に異常がないかどうかを判定する必要がある³⁾。

補足ではあるが、三叉神経痛の患者も歯科領域を受診する可能性がある。Jannettaによると症候性三叉神経痛患者の100名中80名が最初に歯科を受診しているという¹²⁻¹³⁾。脳腫瘍やそのほかの頭蓋内病変の影響で三叉神経痛が生じて歯科を受診することもあるので注意が必要である。

Ⅲ. “口が開きにくい” 顎関節症類似症状

1. 症例：12歳，男児

【主 訴】口が開きにくい。鼻がつまる。

【既往歴】特記事項なし。

【経 過】2か月前から右側頬部が腫脹し口が開きにくくなった。鼻汁・鼻出血を伴っていたため、近医耳鼻科を受診し抗生剤（フルカム）を投与され服用したが軽減しなかった。紹介により徳島大学病院小児科を受診した。右側頸部にリンパ節腫脹を認めたため原因精査のため歯科紹介となった。

初診時、右側後頸部に30×30 mmの腫脹がみられ、開口量は15 mmで開口時に右側咬筋部に疼痛を伴っていた。パノラマエックス線写真にて右側上顎洞内のエックス線透過性が低下し、パノラマ無名線が肥厚していた。さらに上顎洞後壁が消失し翼口蓋窩が確認できない状態であった（図4）。CT検査にて上咽頭部に広範囲の腫瘍が確認され、右側頸部に多数の転移性と思われるリンパ節腫脹が認められた（図5）。悪性腫瘍と頸部リンパ節転移を疑い、再度医科に紹介され、耳鼻科と小児科の共診となった。腫瘍生検の結果、未

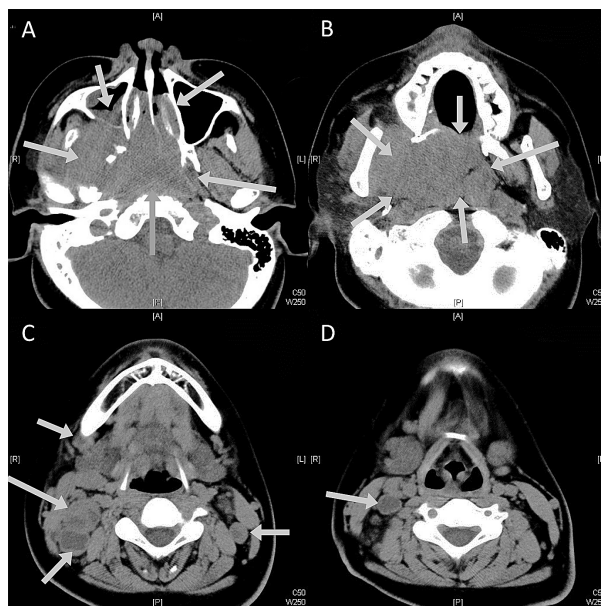


図5 図4と同じ症例のCT画像
咽頭部と鼻腔は腫瘍で閉塞しており、右側の外側翼突筋は腫瘍が浸潤しており輪郭が把握できない。右側上顎洞後壁は破壊され、洞内に腫瘍が浸潤している（A, Bの矢印の領域）。両側頸部には異常腫大した転移リンパ節（矢印）が多数認められる（C, D）。

分化癌と診断され、小児科にて化学療法と放射線療法が行われた。

【診 断】未分化癌，頸部リンパ節転移

2. 症例：60歳，女性

【主 訴】右あごが動かない，関節がピリピリする。

【既往歴】右中耳炎，高脂血症（食事療法のみ）

【経 過】約1年前に右側顎関節の運動性不良を自覚し，また右側顎関節がピリピリすることがあった。近医歯科にて1年間ほどスプリント治療を受けたが症状の改善を認めなかった。最近になり右下口唇にしびれを感じるようになったため紹介により本院を受診した。初診時，無痛最大開口量は19 mmで有痛最大開口量は25 mmであった。右側顎関節部に開口時疼痛を伴う。右側顎関節クリックあり。咀嚼筋に軽度圧痛あり。本院受診後，パノラマ4分割撮影と顎関節MRI検査が行われたが特記異常は指摘されていない。スプリント療法と開口訓練を2か月受けたがしびれの症状が次第に増強したため神経内科に紹介となった。MRI検査にて右側傍咽頭に腫瘍性病変を認め（図6），耳鼻科へ紹介入院となった。その段階でPET/CT検査で全身に多発性の集積結節を認めた。耳鼻科にて傍咽頭部の腫瘍切除術が行われたが，頭蓋内に進展しており完全除去できず術後放射線照射（60 Gy）が行われた。病理は腺様嚢胞癌であった。

【診 断】腺様嚢胞癌

考 察

顎関節症は人口の約70%にみられ¹⁴⁾，高頻度で歯科を受診する可能性のある疾患であるが，これと類似の症状を訴えて歯科を受診する悪性疾患の患者も多い。顎関節症の治療を始める前には，これらの別の疾患による顎運動障害や咀嚼筋疼痛を除外しなくてはいけない。誤って顎関節症と診断し，漫然とスプリント加療を続けると原疾患の加療の機会を失う可能性にもなりかねないので注意を要する。顎関節症と診断する前に，必ず除外診断を考慮すべきである¹⁵⁾。表2に開口障害を示す疾患をまとめた。また，顎関節症の診療は学会が推奨する診断ガイドラインでは，スプリント加療は咀嚼筋疼痛のある患者に対して行い2週間効果が無い場合には専門医に紹介すべきであることが述べられている¹⁶⁾。スプリント加療は，咀嚼筋由来の疼痛には有効であるがそれ以外の要因による顎関節機能障害には効果が無い¹⁷⁾。

今回提示した2症例は悪性腫瘍が咀嚼筋隙に浸潤したことに起因していると考えられる。

症例2については受診時にエックス線撮影，MRI撮影などが実施されているが，病巣を検出できていない。これは，顎関節症用の撮影オーダーであるパノラマ4分割法では，撮影される範囲は顎関節部位に限定され，得られる情報は顎関節の骨形態と開口時の下顎頭の前方移動量である。また顎関節MRI検査においても，関節部に限局した撮像が行われるため関節円板の位置・形態やeffusionの有無などの観察に限定され，咽頭周囲や頭蓋内病変の診断は困難である。特に高齢者においては悪性

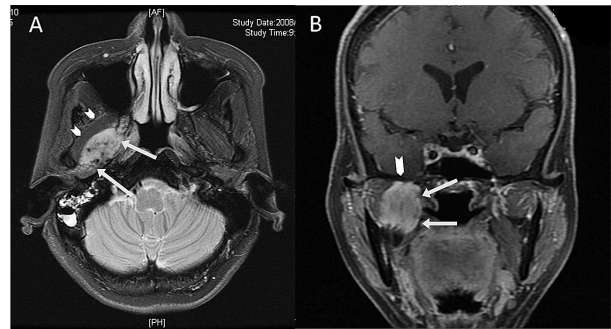


図6 60歳女性（右あごが動かない。関節がピリピリする。）

MRI画像：右側傍咽頭周囲に腫瘍性病変（矢印）を認め，外側翼突筋（矢頭）への浸潤と（A），頭蓋底近くまでの進展（B矢頭）を認める。

表2 顎関節症と鑑別を要する疾患

1. 頭蓋内疾患	腫瘍・動脈瘤・膿瘍・出血・血腫・浮腫
2. 隣接器官の疾患	
1) 歯および歯周疾患	歯髄炎・歯周炎・智歯周囲炎
2) 咀嚼筋の疾患	腫瘍・癭痕拘縮
3) 耳疾患	腫瘍・外耳炎・中耳炎・水疱性鼓膜炎
4) 鼻・副鼻腔の疾患	腫瘍・上顎洞炎
5) 咽頭の疾患	腫瘍・術後癭痕・Eagle's 症候群
6) 側頭骨の疾患	腫瘍・骨炎
7) 顎骨の疾患	腫瘍・骨炎・筋突起過長症（肥大）
8) その他の疾患	茎状突起過長症・慢性顔面痛症候群
3. 筋・骨格系の疾患	筋ジストロフィー・Ehlers-Danlos 症候群
4. 心臓・血管系の疾患	虚血性心疾患・頸動脈圧痛・側頭動脈炎
5. 神経疾患	三叉神経痛・舌咽神経痛・蝶形骨口蓋神経痛・非定型顔面痛・耳帯状疱疹・Ramsy-Hunt 症候群・末梢神経炎・破傷風・外傷または術後神経痛
6. 頭痛	片頭痛・群発頭痛・緊張型頭痛など
7. 精神神経学的疾患	精神分裂症・躁鬱病・不安神経症・器官神経症・情緒障害・体感異常症など

（顎関節学会2001改訂版から引用）

病変の発現頻度が高いことを考慮すると，まず顎関節症以外の病変の除外診断が重要である。そのためには，通常の顎関節症患者と矛盾するような症状の訴えや経過を

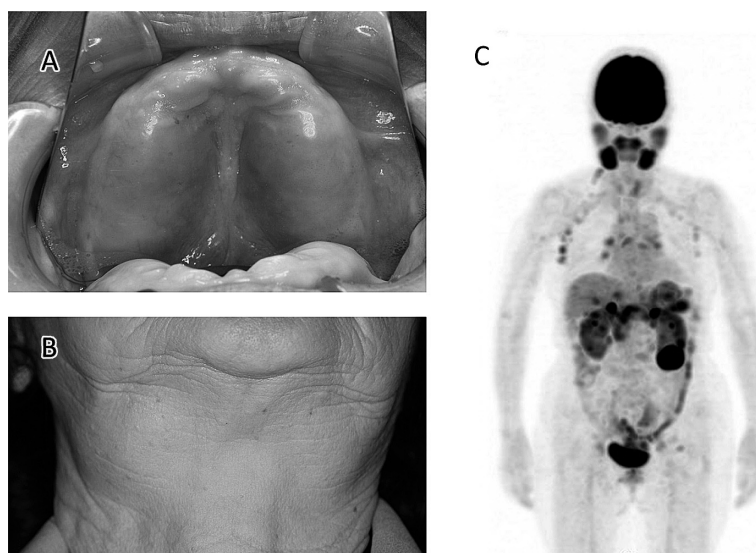


図7 75歳女性（口蓋の両側と両側顎下部の腫脹）

A（口腔内写真）：両側口蓋に表面は正常粘膜で被覆された膨隆がみられる。

B（頸部写真）：両側顎下部付近に腫脹がみられる。

C（PET 画像）：両側（口蓋部・顎下腺・耳下腺），右側頸部・縦隔・肺門リンパ節，両側腋窩リンパ節，鼠径リンパ節，両側腎，脾臓に集積亢進が認められる。

たどる場合には，除外診断のための適切な画像検査を行う必要がある。

IV. “痛くないけど腫れる” “くり返し腫れる” 無痛性腫脹・反復性腫脹

1. 症例：75歳，女性

【主 訴】両側口蓋部と顎下部の腫脹

【既往歴】脊柱管狭窄症・薬物アレルギー（アスピリン）

【経 過】3年前から両側口蓋部と顎下部に腫脹を認め，近くの病院の耳鼻咽喉科にてCT，MRI 精査を行い，悪性所見はないとのことで経過観察中である。しかし，それ以降も顎下部の腫脹は増大と縮小を繰り返している。かかりつけ歯科医に相談したところ，本院での精査加療を勧められ，紹介により来院した。両側口蓋部に35×22 mmの腫瘍を認めた。波動をふれるが圧痛および自発痛はない（図7 A）。両側顎下部に腫脹を認めるが，圧痛・自発痛をとまなわない（図7 B）。単純CT検査では両側口蓋部に濃度が均一な軟組織腫瘍を認め，同部に骨破壊は認めなかった。両側顎下腺が顕著に腫大しており，右側頸部には腫大したリンパ節が観察された。血液検査で異型リンパ球がみられたため，造血管腫瘍が疑われ口蓋部腫瘍の生検が実施され，悪性リンパ腫と確認された。PET/CTでは口蓋部軟部腫瘍（SUVmax6.0），左右耳下腺部（SUVmax3.6, 4.5），左右顎下腺部（SUVmax7.9, 7.4），頸部リンパ節，縦隔・肺門部リンパ節，左右腋窩リンパ節，左鼠蹊部リンパ節，両側腎臓が腫大かつFDGの集積亢進，脾臓のびまん性集積亢進が指摘された（図7 C）。

患者の希望で近医にて加療となった。

【診断】悪性リンパ腫

2. 症例：72歳，女性

【主 訴】左側顎下部の反復性の腫脹

【既往歴】高血圧症（降圧剤服用中），糖尿病（HbA1c6.3）

【経 過】3か月から左側顎下部に腫脹が出現し，近医にて抗生剤の投与を受けた。その後も症状の改善・増悪を繰り返している。腫脹の原因として歯科疾患が疑われ近医歯科にて上顎左側第一大臼歯と下顎左側第一大臼歯の抜歯を受け，一旦軽減した。しかし，1ヶ月前から再度左側頸部が腫脹したため，紹介により本院を受診した。初診時左側顎下部周囲にびまん性の腫脹を認めた（図8）。超音波検査にて両側頸部に腫脹したリンパ節を多数認め（図9 A, B），頭頸部（図9 C, D）ならびに躯幹部CT検査が施行された。腋窩・縦隔・腹腔リンパ節にも腫大がみられ，頸部のリンパ節生検にて悪性リンパ腫と診断され，血液内科に紹介となった。

【診 断】悪性リンパ腫 Stage III B

3. 症例：69歳，男性

【主 訴】右顎下部の腫脹

【既往歴】20年以上前から高血圧にて加療中。8年前胆石症，6年前腎結石。

【経 過】1か月前から下顎右側臼歯部の歯痛と歯肉からの出血が出現したため近医歯科を受診し，投薬加療を受け，疼痛は寛解した。しかし，右側顎下部の腫脹

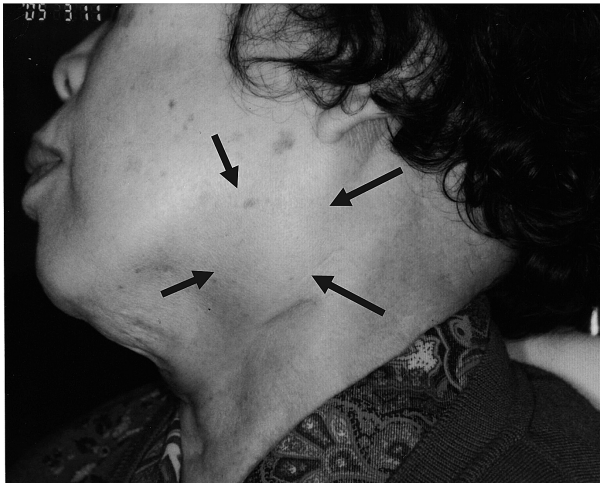


図8 72歳女性（左側顎下部の反復性の腫脹）
左側顎下から上頸部付近が腫脹している。

が残存していたため、精査加療を目的に本院を受診した。下顎右側智歯に軽度の動揺と下顎右側智歯と第二大臼歯間の頬側歯肉に腫脹が見られ、右側耳介前上部に軽度腫脹がみられた。超音波検査において、腫脹部を含めた頸部に正常な内部構造を失った腫大リンパ節が多数観察されたため、造影CT検査を追加した。頸部食道に腫瘍を認め、両側頸部に造影性異常を伴うリンパ節を多数認めた（図10）。食道外科に紹介し、内視鏡検査が実施され食道に38 cm長さの全周性腫瘍が確認され、生検の結果扁平上皮癌であった。放射線・化学療法が行われたが、診断後1年半後に永眠された。

【診断】食道癌（扁平上皮癌）両側頸部リンパ節転移
Stage IVa

考 察

発赤や熱感、疼痛を伴う腫脹は炎症性のことがほとんどであるが、疼痛や発赤を伴わない場合の腫脹には注意が必要である。口蓋部の無痛性腫脹は、耳鼻科とともに歯科を受診する可能性が高い。この部位は、小唾液腺も存在するので腺様嚢胞癌や粘表皮癌などの唾液腺系悪性腫瘍のみならず、悪性リンパ腫も発現する¹⁸⁻²⁰⁾。

扁平上皮癌の場合には粘膜の表面性状が変化していることが多いので鑑別は容易であることが多いが、唾液腺腫瘍や悪性リンパ腫では被覆粘膜は比較的正常を示すため、肉眼では腫瘍が見逃される危険性がある。

また、この部位では、金属製補綴装置などが存在する場合には、CTやMRI検査ではアーチファクトが生じるため病変を十分に描出できず良悪性の鑑別も困難であることが予想される。悪性が疑われる場合にはPET/CT検査がもっとも有効と考える。

顎下部から頸部にかけての腫脹も日常の歯科臨床で遭

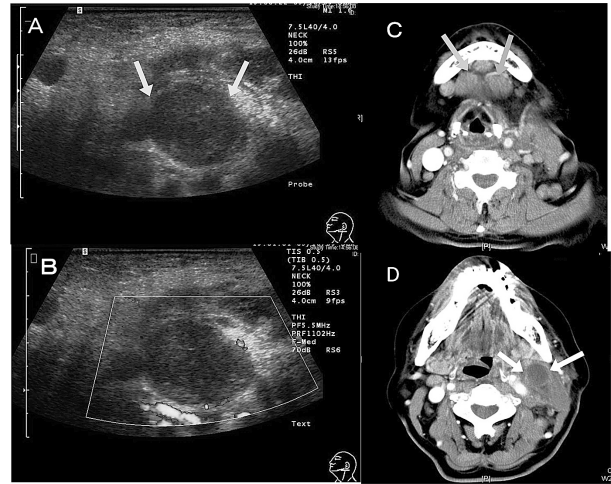


図9 図8と同じ患者の超音波画像とCT画像
A（超音波Bモード画像）：左側上頸部の腫脹部には異常腫大したリンパ節構造を認め、胚門構造が破壊されている。
B（超音波ドプラ画像）：内部血流は観察されない。
C（造影CT画像）：オトガイ下領域、左側副神経領域に腫大したリンパ節を認める。
D（造影CT画像）：A Bの超音波画像と同じ左側上内深頸リンパ節（矢印）は中心部壊死を示している。

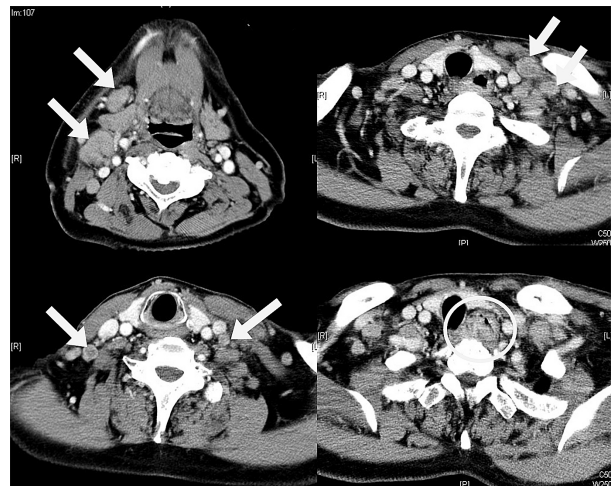


図10 69歳男性（右側顎下の腫脹）
造影CT画像：両側頸部に多数の造影性異常あるいは著しく腫大したリンパ節を認める（矢印）。食道は腫瘍により狭窄している（O）。

遇することが多い。顎下部や上頸部は口腔領域の所属リンパ節であるため、腫脹時には医科から紹介されてくることもある。この領域に存在する器官には、顎下腺・甲状腺・気管・食道・脊椎・神経・血管・リンパ節などがあり、いずれの臓器が腫脹をきたした原因であるかを判断する必要がある。そのための検査としては超音波や

CT, MRI 検査が有用である。なかでも非侵襲的に多くの情報を収集でき、造影剤なしに血流状態が把握できることから first choice としての超音波検査は有用である。悪性疾患として特に注意を要するのはリンパ節腫脹である。頸部リンパ節の腫脹の原因は多岐にわたり、炎症性の原因でも菌性感染のほか、結核、梅毒、トキソプラズマ症、伝染性単核症を含むウイルス性疾患、サルコイドーシスなど全身疾患の徴候として発現する。悪性疾患には悪性腫瘍のリンパ節転移、悪性リンパ腫が挙げられる。

リンパ節腫脹については超音波検査を積極的に利用すべきで、良悪性の鑑別に有用である²¹⁾。また、臨床的には炎症性疾患の多くは疼痛を伴い、悪性疾患による頸部リンパ節腫脹には疼痛を伴わないことが多い²²⁾が、確定できないことも多く、早期に上記に示したような画像検査を実施すべきである。内水らは過去5年間の頸部リンパ節腫脹のうち悪性疾患が占める割合は18.7%を示し、そのうちの68%は悪性リンパ腫、残りは転移性腫瘍であったことを報告しており²²⁾、悪性疾患群においては病期期間が炎症性疾患の場合に比べて有意に長く、また確定診断までに要する日数も有意に長く90日以上も要した診断遅延症例もあることを報告している²²⁾。時には原発不明癌の頸部リンパ節転移や、今回提示した症例のように上部食道癌からの頸部リンパ節転移は高頻度に出現することが報告されている²³⁾。さらに下頸部では肺がんや胃がんの鎖骨上窩のリンパ節転移である Virchow 転移²⁴⁾も考慮に入れなくてはならない。

V. “舌が大きくなった”

1. 症例：82歳，女性

【主 訴】舌の急速な肥大に伴う摂食困難

【既往歴】高血圧，糖尿病，高脂血症。

【家族歴】特記なし。

【経 過】半年前に義歯不適合を自覚し，近医歯科を受診した。その際，舌の腫大を指摘されていた。その後も徐々に腫大し，摂食困難をきたすようになったため本院を受診した。

初診時，舌は安静時でも突出状態にあり，口腔閉鎖ができない状態であった（図11 A）。舌は弾性硬を示し乳頭は萎縮しており，舌の運動性も不良であった。CT・MRI（図11 C D）・超音波検査を行ったところ腫瘍性病変は検出できず，舌が均一に全体に腫大している所見のみであり代謝異常を疑った。舌の生検目的で入院し，血液・尿検査でベンズジョーンズ蛋白が確認され，骨髓穿刺所見とあわせて多発性骨髄腫の診断が得られた。舌の生検前に鬱血性心不全と肺水腫を併発し永眠された。初診から1か月半後であった。剖検がなされ，舌（図12）・心臓・食道・胃・小腸・大腸・腎臓・甲状腺にアミロイド沈着を認めた。

【診 断】骨髄腫，アミロイドーシスによる巨舌症

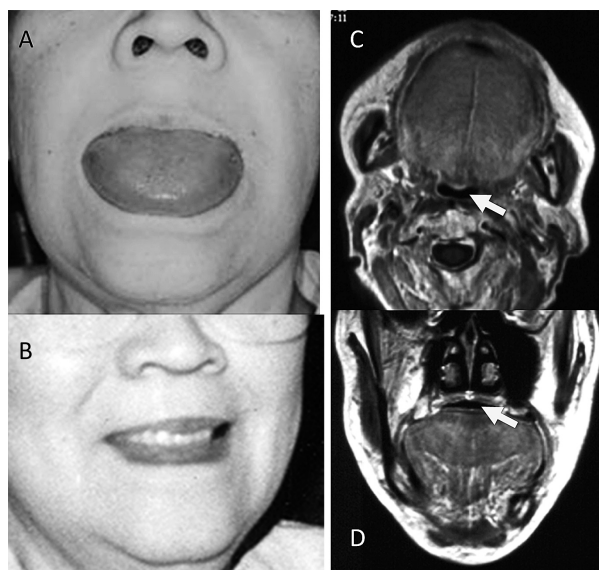


図11 82歳女性（舌の急速な肥大による摂食困難）

A（初診時顔貌写真）

B（4か月前に撮影されたスナップ写真）：明らかに舌が腫大し口腔の閉鎖は不能な状態である。

C（MRI 軸断面像）

D（MRI 冠状断面像）：正常構造を保ったまま舌が著しく肥大しており，咽頭腔が狭小化している（矢印）。



図12 図11と同患者の剖検された舌（右）

左側は正常サイズの56歳・男性の舌。本患者の舌は筋組織がアミロイドに置換されており，筋組織はほとんど観察されない。

考 察

舌は口腔がんの最も発現頻度の高い部位であり，報告によって差はあるが頭頸部癌の5割程度と言われている²⁵⁾。舌は血管・筋肉・神経由来の悪性腫瘍が発現する可能性があるが，今回は他科領域で早急に治療を受けるべき悪性疾患の徴候の発現部位として解説する。扁平上皮癌の場合は，被覆上皮が悪性化するので潰瘍や白色化などの局所的变化で悪性を疑うのは比較的容易であるが，それ以外の悪性腫瘍や悪性病変の代謝性変化として舌に変化が生じる場合がある。代表的な疾患としてリンパ腫²⁶⁾と骨髄腫が挙げられる。

表3 巨舌症をきたす疾患

診断名	頻度	機序
若年者		
クレチン病	きわめてまれ	甲状腺ホルモン欠乏
ダウン症候群	もっとも多い	トリソミー21
先天性巨舌症	かなりまれ	16染色体の異常または欠損
成人		
甲状腺機能低下症	多い	甲状腺ホルモン欠乏
無歯顎	さまざま	口腔内空隙を補間するための舌の増大
末端肥大症	まれ	成長ホルモン過剰
アミロイドーシス		アミロイドの
局所アミロイドーシス	きわめてまれ	舌の一部への蓄積
全身性アミロイドーシス	かなりまれ	舌全体への顕微鏡的蓄積
腫瘍	まれ	深部または舌腹側の腫瘍
急性舌炎と 血管神経性浮腫	まれ	虫さされ、ハチさされ 急性熱傷・化学反応
クローン病と腸疾患	非常にまれ	慢性炎症による腫脹と肥厚

(D. W. Beaven, S. E. Brooks 『カラーでみる舌の診かた』1990年, 南江堂, p56表2 巨舌症から引用)

表4 アミロイドーシスの種類

全身性	免疫グロブリン性アミロイドーシス (ALアミロイドーシス) AAアミロイドーシス 透析アミロイドーシス 家族性アミロイドーシス 老人性全身性アミロイドーシス
限局性	アルツハイマー病 脳アミロイドアンギオパチー プリオン病

今回提示したのは骨髄腫に起因するALアミロイドーシス(免疫グロブリン性アミロイドーシス)により巨舌症を呈した症例である。巨舌症をきたす原因は表3に示すように、ホルモン異常や炎症性の原因もある。アミロイドーシスも悪性疾患以外の多くの要因で生ずる(表4)が、ナイロンに似た線維状の異常蛋白質であるアミロイドが全身の様々な臓器に沈着して機能障害を起こす疾患の総称である。付着した器官によって、心不全、全身衰弱、腎機能障害、肝腫大、脾腫、皮膚障害などのさまざまな臨床症状を呈する。アミロイドーシスは、口腔では舌が好発部位であり²⁷⁾、結節性に生じる場合もあるが舌が広範囲に腫脹もしくは膨隆し巨舌化する場合もある²⁸⁾。提示症例は短期間で舌が巨大化して発見され、これを契機に骨髄腫の確定診断に至った。しかし他臓器においてもアミロイドーシスが進行しており不幸な転帰となった。この症例を経験した後にアミロイドーシスにより生じた舌の変化をきっかけとして骨髄腫が疑われ、血液内科で確定診断に至った症例は把握しているだけで2例あった。

VI. まとめ

顎口腔周辺に関する患者の訴えには、歯科以外の領域ですみやかに診断加療を進めるべき多くの悪性疾患が隠されている。遭遇はまれかもしれないが、患者の生命後に影響することも念頭において診療をしたい。

VII. 謝辞

本論文の執筆にあたり、症例記録を参考にさせていただきました口腔内科、口腔外科、顎関節症外来、放射線科の先生方にこの場をお借りして厚くお礼を申し上げます。

参考文献

- 1) 小原圭太郎, 河原 康, 中山敦史, 福田幸太, 阿部 厚, 栗田賢一: Numb Chin Syndrome を初発症状とした下顎骨悪性腫瘍の1例. 愛知学院大学歯学会誌 50 (1), 15-20 (2012)
- 2) Kalladka M, Proter N, Benoliel R, Czerninski R, Eliav E: Mental nerve neuropathy: patient characteristics and

- neurosensory changes. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 106 (3), 364-370 (2008)
- 3) Marinella M: Numb chin syndrome: A subtle clue to possible serious illness. *Hospital Physician* January, 54-56 (2000)
 - 4) Massey EW, Moore J, Schold SC: Mental neuropathy from systemic cancer. *Neurology* 31 (10), 1277-1281 (1981)
 - 5) 佐藤 元: Numb chin syndrome で発症した悪性リンパ腫. *神経内科* 35 (3), 336-338 (1991)
 - 6) van der Waal RI, Buter J, van der Waal I: Oral metastases: report of 24 cases. *Br J Oral Maxillofac Surg* 41 (1), 3-6 (2003)
 - 7) Hirshberg A, Leibovich P, Buchner A: Metastatic tumors to the jawbones: analysis of 390 cases. *J Oral Pathol Med* 23 (8), 337-341 (1994)
 - 8) Kruse AL LH, Obwegeser JA, Edelmann L, Graetz KW: Temporomandibular disorders associated with metastases to the temporomandibular joint: a review of the literature and 3 additional cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 110 (2), 21-28 (2010)
 - 9) Daley T, Darling MR: Metastases to the mouth and jaws: a contemporary Canadian experience. *J Can Dent Assoc* 77: b67 (2011)
 - 10) Baskaran RK, Krishnamoorthy, Smith M: Numb chin syndrome--a reflection of systemic malignancy. *World J Surg Oncol* 4, 52 (2006)
 - 11) Dispenzieri A, Kyle RA: Neurological aspects of multiple myeloma and related disorders. *Best Pract Res Clin Haematol* 18 (4), 673-688 (2005)
 - 12) Jannetta PJ: Treatment of trigeminal neuralgia by micro-operative decompression. *Neurological Surgery*. 6. Philadelphia, London, Tront, Mexicocity, Sydney, Tokyo, Saunders Company. 1982, 3589-3603.
 - 13) 町 俊夫, 宮崎東洋: 数年の経過後に脱落症状が出現した三叉神経痛の一症例. *日本臨床麻酔学会誌* 5 (2), 179-184 (1985)
 - 14) AW S, RJ G, L W. Cost-effectiveness of treatments fir temporomandibular disorders: biopsychosocial intervention versus treatment as usual. *J Am Dent Assoc*. 138, 202-208 (2007)
 - 15) 飯塚忠彦: 顎関節症診療に関するガイドライン. *日本顎関節学会*, 2001, 28.
 - 16) 木野孔司: 顎関節症患者のための初期治療診療ガイドライン 咀嚼筋痛を主訴とする顎関節症患者に対すスタビライゼーションスプリント治療について. 一般歯科医師編. 2010
 - 17) Yuasa H, Kino K, Kubota E, Kakudo K, Sugisaki M, Nishiyama A, et al: Primary treatment of temporomandibular disorders: The Japanese Society for the temporomandibular joint evidence-based clinical practice guidelines, 2nd edition. *Japanese Dental Science Review*, 2013, in press.
 - 18) Frei M, Dubach P, Reichart PA, Schmitt AM, Mueller-Garamvölgyi E, Bornstein MM: Diffuse swelling of the buccal mucosa and palate as first and only manifestation of an extranodal non-Hodgkin 'double-hit' lymphoma: report of a case. *Oral Maxillofac Surg* 16 (1), 69-74 (2012)
 - 19) Blok P, van Delden L, van der Waal I: Non-Hodgkin's lymphoma of the hard palate. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 47 (5), 445-452 (1979)
 - 20) Kemp S, Gallagher G, Kabani S, Noonan V, O'Hara C: Oral non-Hodgkin's lymphoma: review of the literature and World Health Organization classification with reference to 40 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 105 (2), 194-201 (2008)
 - 21) Sugawara C, Takahashi A, Kubo M, Otsuka H, Ishimaru N, Miyamoto Y, et al: Preoperative evaluation of patients with squamous cell carcinoma of the oral cavity: fluorine-18 fluorodeoxyglucose positron emission tomography/computed tomography and ultrasonography versus histopathology. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 114 (4), 516-525 (2012)
 - 22) 内水浩貴, 小林俊樹, 森 恵莉, 山田裕子, 柳 清: 過去5年間の頸部リンパ節腫脹に対する検討. *日耳鼻* 115, 546-551 (2012)
 - 23) 三戸安郎: 食道癌の頸部リンパ節転移. *日消外会誌* 14 (7), 1016-1022 (1981)
 - 24) 梶野真一: 左鎖骨上窩リンパ節 (Virchow) 転移をきっかけに発見された無黄疽十二指腸乳頭部癌の一例. *名古屋市立病院紀要* 31, 15-18 (2009)
 - 25) 浦出雅博: 『口腔外科学』. 第3版第1刷. 東京都文京区, 医歯薬出版, 2010
 - 26) 奥村 晃, 山下佳雄, 辻 光弘, 重松正仁, 野口信宏, 後藤昌昭: 舌下面に発生した悪性リンパ腫の1例. *日本口腔外科学会雑誌* 52 (3), 203-206 (2006)
 - 27) van der Waal RI, van de Scheur MR, Huijgens PC, Starink TM, van der Waal I: Amyloidosis of the tongue as a paraneoplastic marker of plasma cell dyscrasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 94 (4), 444-447 (2002)
 - 28) 木村吉宏, 島原政司, 橋口範弘, 中島世一郎, 島原武司, 藤田 寛: 舌および顎下部の腫脹を契機に発見された全身性アミロイドーシスの1例. *日本口腔外科学会雑誌* 55 (2), 71-75 (2009)