

感冒症状を契機として発症した pure trigeminal motor neuropathy の 1 例

津川 潤¹⁾ 合馬 慎二¹⁾ 深江 治郎¹⁾
坪井 義夫^{1)*} 牧 美充²⁾ 法化図陽一²⁾

要旨：症例は 67 歳女性である。咀嚼障害と開口時下顎の右側偏倚を主訴に来院した。神経学的には、右咀嚼筋群の萎縮がみられた、顔面感覚に異常はみとめなかった。発症時に感冒症状をともっており、脳脊髄液検査では軽度の細胞増多をみとめた。頭部 MRI で、脳幹あるいは脳神経に形態異常はみとめなかった。本症例のように、片側下顎神経運動枝のみが障害される「pure trigeminal motor neuropathy」は、ウイルス感染との関与が指摘されているが、その病態は明らかでない。

(臨床神経 2014;54:515-517)

Key words : pure trigeminal motor neuropathy, 咀嚼障害, 先行感染

はじめに

Pure trigeminal motor neuropathy (PTMN) とは、片側の三叉神経運動枝障害のみを呈する疾患で、1988 年に Chia ら¹⁾ がはじめて報告した。様々な疾患との関与が報告されているが^{2)~5)}、病態は明らかでない。今回われわれは、PTMN と考えられる症例を経験した。本症例の臨床経過から、本症の発症にウイルス感染による直接的な神経障害あるいは感染後の免疫応答が関与した末梢神経障害などが考えられる。本症例の臨床経過や過去の報告との比較をおこない報告する。

症 例

症例：67 歳、女性

主訴：物が噛みにくい

家族歴・既往歴：特記事項なし。

現病歴：2010 年 7 月某日より咳や咽頭痛など感冒症状が出現した。翌日より、口の開きづらさを自覚した。第 3 病日に近医を受診し、脳脊髄液検査で単核球優位の細胞増多をみとめ、ステロイドパルス療法がおこなわれたが、症状の改善はなかった。第 5 病日には感冒症状は改善したが、物が噛みにくく、食事形態をきざみ食にした。開口時に下顎が右側へ偏倚することに気付いた。第 20 病日に退院したが、その後右側の口が開けにくく、開口時の下顎右側偏倚は改善しなかった。2011 年 9 月頃に頬部、側頭部が痩せていることに気づき、2012 年 5 月下旬に当科を受診した。

一般身体所見：一般身体所見に特記事項なし。

神経学的所見：開口時に下顎が右側へ偏倚し、右咬筋および側頭筋は著明に萎縮している (Fig. 1)。顔面感覚に異常はなく、角膜反射も陽性で、その他に神経学異常所見はみとめない。

初診時検査所見 (2010 年 7 月 16 日)：血算や凝固系は正常。生化学では、Fe 47 $\mu\text{g}/\text{dl}$ (60~130 $\mu\text{g}/\text{dl}$) と軽度の鉄欠乏をみとめる以外に異常所見はみられなかった。脳脊髄液所見は、細胞数が 41/ μl (単核球 90%, 分葉核球 9%) と上昇し、蛋白や糖には異常なく、ミエリン塩基性蛋白も 41.8 pg/ml (< 102 pg/ml) で、髄液細菌培養や墨汁染色は陰性であった。

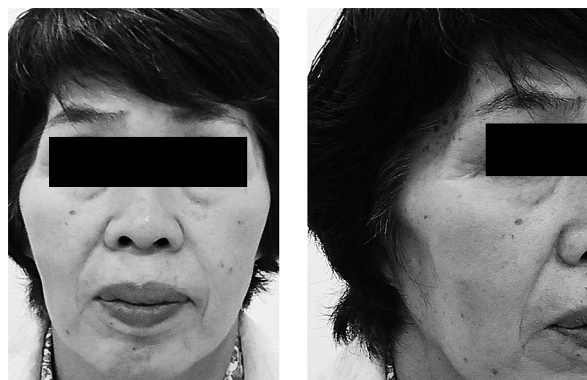


Fig. 1 Photograph of the patient's face. Severe atrophy of the right temporalis and masseter muscles was observed.

*Corresponding author: 福岡大学医学部神経内科学教室 [〒 814-0180 福岡市城南区七隈 7-45-1]

¹⁾ 福岡大学医学部神経内科学教室

²⁾ 大分県立病院神経内科

(受付日：2013 年 7 月 22 日)

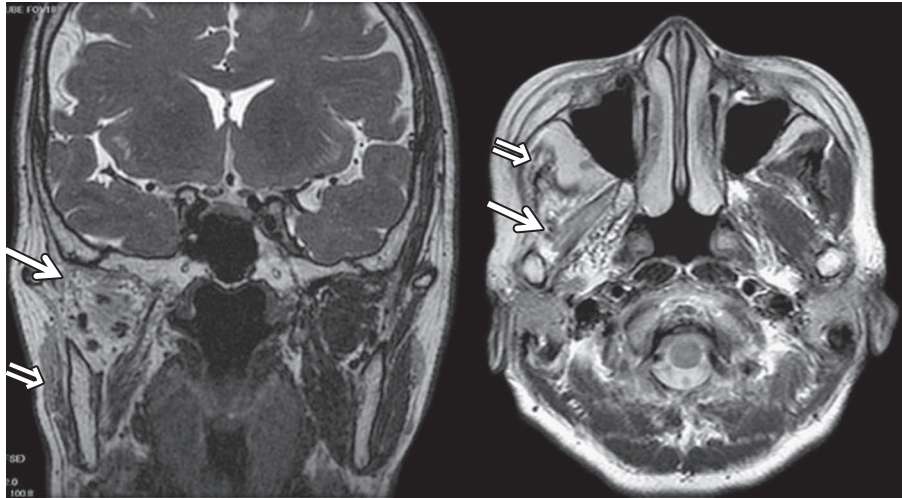


Fig. 2 Scans of brain MRI.

T₂-weighted images (Coronal, 3.0 T, TR: 1,400 ms, TE: 100.8 ms; Axial, 3.0 T, TR: 4,073.0 ms, TE: 100.6 ms) show atrophy of the right masseter (⇒) and pterygoid muscles (→).

抗ガングリオシド抗体の測定はおこなっていない。

画像所見：X年6月28日におこなった頭部MRIでは、右側の側頭筋、翼突筋および咬筋など咀嚼筋群は著明に萎縮していた (Fig. 2)。

筋電図所見：側頭筋の針筋電図では、運動単位 (motor unit potential; MUP) が著明に減少しており、polyphasic MUP および giant MUP をみとめ、慢性脱神経所見を呈していた。

考 察

本症例の特徴は二つ挙げられる。一つは、臨床経過において、咀嚼障害が感冒症状に続いて出現した点、発症時の脳脊髄液検査で単核球優位に細胞数が上昇している点などから、何らかのウイルス感染を契機に発症したことが推察される事である。もう一つは、解剖学的病巣診断として、右咀嚼筋群が選択的に障害され、顔面感覚障害はともなっていないことから右側下顎神経運動枝のみが障害されている事である。

一般に、三叉神経障害をきたす疾患には、外傷や腫瘍、感染症など鑑別疾患が多彩であるが、これら疾患の多くは、感覚障害を呈することが主体で、本症例のように下顎神経運動枝のみが障害されることはきわめてまれである。

一方で、本症例と同様の症例について、Chiaら¹⁾は、1988年に片側の三叉神経運動枝障害のみを呈した5症例を『pure trigeminal motor neuropathy』としてはじめて報告した。それ以降、脳梗塞²⁾、頭部外傷³⁾、神経線維腫症II型⁴⁾、頭蓋底腫瘍⁵⁾など様々な疾患で同様の症例が報告されている。本邦においても、これまで3例ほど報告されており、多発性硬化症や脊髄空洞症との関連について指摘しているが、いずれも病態機序は明らかでなく、原疾患による直接的な下顎神経運動枝の障害と考察されている²⁾⁶⁾⁷⁾。

一方、原著であるChiaら¹⁾の報告では、他の神経学的基礎疾患がなく5例中3例が感冒症状で発症し、原因としてウイルス感染の関与を指摘しており、本症例の経過と類似しており、感染を契機に、病変部へのウイルスの直接的障害あるいは感染後の免疫反応が病態に関与している可能性が考えられる。また、Kangら⁸⁾も本症例やChiaらの報告と同様に感冒症状後に発症しており、これらの症例は、二次性障害の報告とは別の病態と考えるべきである。

本症の機序については、運動神経線維と感覚神経線維の神経膜の違いや障害部位の虚血など考察されているが詳細は明らかでない¹⁾。

運動神経のみが選択的に障害される多変性運動ニューロパチーは、原則的には感覚障害をみとめず、頻度は低いが一部の症例にIgM型GM1抗体が検出される⁹⁾。また、GM1抗体陽性のギラン・バレー症候群も純粋運動型が多く、本症例も類似の病態に関与していた可能性も否定できないが、これまでに抗ガングリオシド抗体陽性のPTMNの報告はない。

感冒症状後に咀嚼障害をきたし、片側下顎神経麻痺を呈したばあいには本症の可能性を考慮する必要があると考えられる。

※本論文に関連し、開示すべきCOI状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

文 献

- 1) Chia LG. Pure trigeminal motor neuropathy. Br Med J 1988; 296:609-610.
- 2) 千葉 進, 本井ゆみこ, 野呂浩史ら. Pure trigeminal motor neuropathy の1例. 臨床神経 1990;30:883-887.
- 3) Ko KF, Chan KL. A case of isolated trigeminal motor neuro-

- pathy. Clin Neurol Neurosurg 1995;97:199-200.
- 4) Beydoun SR. Unilateral trigeminal motor neuropathy as a presenting feature of neurofibromatosis type 2 (NF2). Muscle Nerve 1993;16:1136-1137.
 - 5) Park KS, Chan JM, Jeon BS, et al. Unilateral trigeminal mandibular motor neuropathy caused by tumor in the foramen ovale. J Clin Neurol 2006;2:194-197.
 - 6) 高松和弘, 滝沢貴昭, 宮本 勉. 左三叉神経支配領域の筋萎縮を認めた1例. 臨床神経 1993;33:541-545.
 - 7) Chiba M, Echigo S. Unilateral atrophy of the masticatory muscle and mandibular ramus due to pure trigeminal motor neuropathy: a case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol 2012;113:e30-e34.
 - 8) Kang YK, Lee EH, Hawang M. Pure trigeminal motor neuropathy: a case report. Arch Phys Med Rehabil 2000;81:995-998.
 - 9) 船越 慶, 小鷹昌明. 末梢神経疾患の発生機序・臨床所見 CIDP, MMN. Clin Neurosci 2007;25:767-770.

Abstract

Pure trigeminal motor neuropathy with an antecedent infection: a case report

Jun Tsugawa, M.D.¹⁾, Shinji Ouma, M.D.¹⁾, Jiro Fukae, M.D.¹⁾,
Yoshio Tsuboi, M.D.¹⁾, Yoshimitsu Maki, M.D.²⁾ and Youichi Hokezu, M.D.²⁾

¹⁾Department of Neurology, Fukuoka University, School of Medicine

²⁾Department of Neurology, Oita Prefectural Hospital

Pure trigeminal motor neuropathy is a rare clinical manifestation, and its etiology remains obscure. Here, we report the case of a 67-year-old woman who presented with jaw deviation to the right. Neurological examination revealed atrophy of the right temporal and masseter muscles and jaw deviation to the right. Absence of other cranial nerve abnormalities, such as loss of sensation in the trigeminal nerve territory, suggested involvement of only the motor component of the right mandibular nerve. Results of laboratory tests, including hematologic, serologic, and biochemical analysis, were unremarkable, except for the finding of lymphocytic pleocytosis in the cerebrospinal fluid on symptom onset. Brain MRI revealed no abnormality in the brainstem or trigeminal nerve. Electromyography indicated chronic denervation in the right temporal muscle. A few days before the occurrence of the neurological signs, the patient had experienced flu-like symptoms; this suggests that post-infection neuropathy may be a possible cause of the right motor trigeminal neuropathy observed in our case.

(Clin Neurol 2014;54:515-517)

Key words: pure trigeminal motor neuropathy, masticatory dysfunction, antecedent infection
