

症例報告

当院で経験した舌小帯短縮症家系内発症例について

南本 俊之* 足立 真紀* 依田弥奈子**
佐久間智子*** 石川 耕資*** 林 利彦***

A Case of Familial Ankyloglossia (Tongue-tie)

Toshiyuki MINAMIMOTO, Maki ADACHI, Minami YODA
Tomoko SAKUMA, Kosuke ISHIKAWA, Toshihiko HAYASHI

Key words : Ankyloglossia — Tongue-tie — Inheritance

はじめに

舌小帯短縮症は、2～5%ほどの発生頻度を有する舌の先天異常で¹⁾、胎生期における舌原基と下顎歯槽粘膜の分離不全と、生後の舌小帯の短縮障害が加わって成立するとされている²⁾。その家系内発症はいくつかの報告があるに過ぎない。

今回当院で舌小帯短縮症の家系例を経験したので、若干の考察を加えて報告する。

症 例

患者1, 患者2は兄弟である。

患者1: 9ヶ月, 男性。

家族歴・既往歴: 特記事項なし。

現病歴: 在胎38週6日, 生下時体重2472gで出生している。妊娠中や出産時に特記すべき事はなかった。前医にて、舌が顎につながっていると説明を受け、生後9ヶ月に当科受診となった。

初診時現症: 舌小帯が舌尖部まで付着する舌小帯短縮症を認め、舌尖挙上が障害される望月の分類の第2度に相当した。哺乳障害は認められなかった。

治療および経過: 家族と相談の上、生後1年3ヶ月に水平切開法による手術を施行した(図1 a, b, c, d)。現在、術後5年4ヶ月経過しており、外来で定期的に経過観察している。十分に舌を伸ばすことができる(図2 a, b)が、無声歯茎摩擦音の「す」が無声後部歯茎摩擦音の「しゅ」に、無声歯茎破擦音の「つ」が無声歯茎硬口蓋破擦音の「ちゅ」となっている。

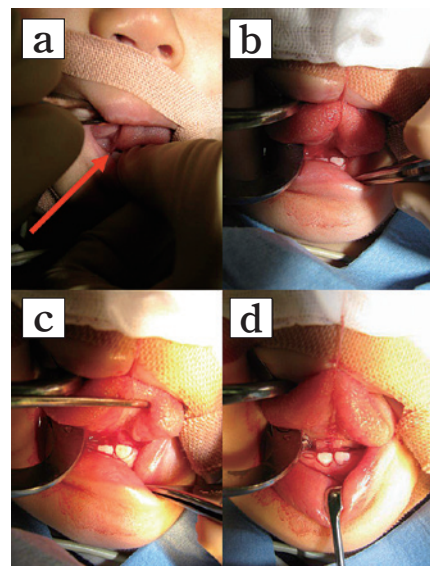


図1 症例1の術中所見を示す。

- a: 舌小帯(→)が舌尖部に付着しており、舌を伸ばすことができない。
b: 付着している舌小帯に切開を加えることにより舌尖部を挙上することができる。
c: 十分に舌が延びることを確認し、
d: 舌が伸びる方向に吸収糸で縫合する。

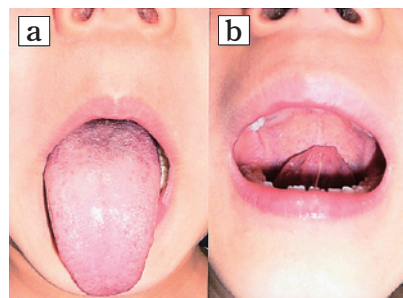


図2 症例1の術後5年4ヶ月の状態である。

- a: 十分に舌を出すことができる。
b: 図1 aのような舌小帯の付着は認めない。

*市立函館病院 形成外科

**市立函館病院 小児科

***北海道大学大学院医学研究科・医学部形成外科

患者2：1歳2ヶ月，男性。

家族歴・既往歴：兄（患者1）が舌小帯短縮症である。

現病歴：在胎39週6日，生下時体重2874gで出生している。妊娠中や出生時に特記すべき事はなかった。出生後，兄と同様に，舌が顎につながっていると説明を受け，生後1年2ヶ月に当科受診となった。

初診時現症：舌小帯が舌尖部まで付着する舌小帯短縮症を認め，舌尖挙上が障害される望月の分類の第2度に相当した。哺乳障害は認められなかった。

治療および経過：家族と相談の上，生後1年6ヶ月に水平切開法による手術を施行した（図3a, b, c, d）。現在，術後1年5ヶ月経過しており，外来で経過観察を行っている。発音の確認はできなかったが，十分に舌を伸ばすことができる（図4）。

患者1, 2の経過観察中に改めて家族歴を聴取すると，患者1, 2（兄弟）の父も同じような舌の状態であり，手術は行わなかったが，言語訓練を受けたとのことであった（図5a, b）。

考 察

舌小帯とは，舌下面正中の縦皺襞が下顎前歯部舌側歯肉部の後部に繋がるものをいい，舌の運動機能の調節，舌の後退を防止する機能を担うものである³⁾。

舌小帯短縮症は舌強直症，舌癒着症ともいい，胎生期における舌原基と下顎歯槽粘膜の分離不全と，生後の舌小帯の短縮障害が加わって成立するとされている²⁾。そ

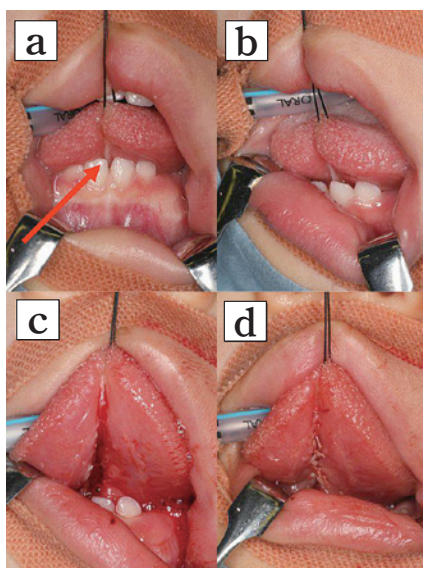


図3 症例2の術中所見を示す。

- a：舌小帯（→）が舌尖部に付着しており，舌を伸ばすことができない。
- b：側方に牽引しても舌を伸ばすことができない。
- c：十分に舌を延びることを確認し，
- d：舌が伸びる方向に吸引糸で縫合する。

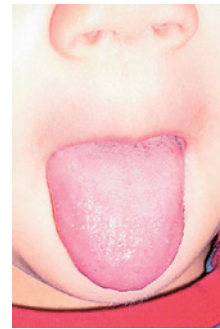


図4 症例2の術後1年5ヶ月の状態である。十分に舌を伸ばすことができる。

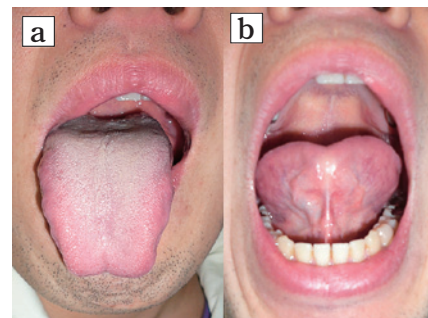


図5 症例1, 2の父の舌の所見である。

- a：舌はハートのマークをひっくり返したような形状を若干示している。
- b：やや太い舌小帯が舌尖部近くまで付着している。

の発生頻度は，診断基準により若干の差があるが，本邦では2～5%程度，欧米でも5%程度とされている¹⁾。乳児期に吸啜がうまく行えないための哺乳・摂食障害を，成長に伴う言語獲得のときに発音障害を起こすことがあるとされている⁴⁾。発音障害は歯茎側面接近音や歯摩擦音のように舌尖を使う子音の発音がしづらくなると思われる。堤らは，舌尖を使う滑音，特にラ行音が不明瞭になると述べ⁵⁾，Klockarsは，舌小帯短縮症ではフィンランド語に特有である palatal R の発音がうまく出来ないことが手術を行った理由のかなりの割合を占めている⁴⁾と述べている。当科で経験した症例でも，舌の運動が制限されると思われる発音の状態を呈しており，慎重に経過観察を行う予定である。習得する言語により発音障害に差異があり，これが症例の発掘と治療に関して差異を引き起こす原因であるように思われた。

哺乳・摂食障害や発音障害がいずれも軽度である場合，本人や周囲の人々も気づかず経過していることも推測され，『異常』というよりは『多様性』のひとつとして考えられるのかもしれない。

今回当科で経験した舌小帯短縮症は兄弟2人とその父親という家系内発症例であった。舌小帯短縮症の家系内発症例は，1947年の渡邊から，2012年のHanらまで9編の報告例を収集することが出来た^{4, 6-13)}（表1）。その

表1 舌小帯短縮症の家系内発症の報告

報告年	報告者	症例の内容
1947	渡邊 ⁶⁾	兄弟(兄と弟の2例)
1983	Sato et al. ⁷⁾	症例は男子, 母方の叔母に舌小帯短縮症がある
1998	三好ら ⁸⁾	両親, 同胞6名のうち, 父親を除く7名(母親, 男子5例, 女子1例)に舌小帯短縮症がある
2005	雲丹亀ら ⁹⁾	姉妹(姉と妹の2例)
2007	中野ら ¹⁰⁾	兄弟(兄と弟の2例)とその母親, 母方の祖父, およびその家系に広く見られた
2007	尾崎ら ¹¹⁾	症例は女子, 祖父, 母親に舌小帯短縮症がある
2007	Klockars ⁴⁾	同一家系4世代での発症例で, 曾祖母, 父, 父の兄弟, 父の従兄弟, 症例(男子), 兄, 弟
2010	Morowati et al. ¹²⁾	同一家系5世代での発症例で, 4世代目男性1例, 女性2例, 5世代目男性1例, 女性1例
2012	Han et al. ¹³⁾	自分の病院での10年間149例の家系図分析で58例に同一家系内に舌小帯短縮症がある
2015	自験例	兄弟(兄と弟の2例)とその父親

多くが一家系における報告であったが, Hanらの報告は同一施設での過去10年間で行った149例の舌小帯短縮症のうち, 58例に同一家系内での舌小帯短縮症を認めたというものであった¹³⁾。自験例とHan以外の8家系, 合計9家系を, 家系図を用いて検討してみた。その結果, 同胞にみられるものが7例^{4, 6, 8-10, 12)}, 親子でみられるものが5例^{4, 8, 10, 11)}, 親子以外の血族にみられるものが2例^{7, 12)}, 血族結婚で見られたものが1例¹²⁾であった。Hanらの報告では, 58例のうち46例が同胞のみにみられ, 6例が親子2世代にわたって, 6例が祖父母, 親子の3世代にわたってみられたと述べている¹³⁾。自験例は, 同胞にみられ, 親子で見られるものであった。祖父母と孫のように世代を超えた報告例⁴⁾や, 叔母と甥というような報告例⁷⁾もあり, これらを踏まえると, 舌小帯短縮症は, 不完全浸透をする常染色体優性遺伝を起こす疾患であることが示唆された。Satoら⁷⁾や中野ら¹⁰⁾は舌小帯短縮症以外の先天異常を伴った本症の家系内発症例を報告しており, いくつかの遺伝因子が関与している場合があると思われる。今後の情報の集積が待たれる疾患だと思われる。

ま と め

当科で経験した舌小帯短縮症の家系内発症例を報告した。本症は舌の先天異常として少なくないが, 日常生活に支障がない場合は治療をうけずに過ごしているものと思われた。家系内発症や遺伝形式に関しては報告が少なく, 今後の情報の集積が必要だと思われる。

本論文の要旨は第67回道南医学会大会(2014年11月15日, 於函館)で発表した。

本論文に関連して開示すべき利益相反はない。

文 献

1) 金子忠良, 豊田潤, 近津大地. 小帯切除術—特に舌小帯と上唇小帯について—. 小児口腔外. 2011; 21:

25-32.

2) 高橋紀子, 島田義弘. 定期歯科検診で検出された某高専校学生における舌疾患の有病状況. 東北大学歯科雑誌. 1989; 8: 19-27.

3) 伊東節子. 舌小帯異常症の言語障害および言語治療に関する臨床的研究. 口病誌. 1988; 55: 159-182.

4) Klockars T. Familial ankyloglossia (tongue-tie). Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2007; 71: 1321-1324.

5) 堤直文. 舌小帯短縮症の音声言語学的研究. 九州歯学会誌. 1969; 23: 589-608.

6) 渡邊義男. 先天性舌小帯過短症. 歯科学雑誌. 1947; 4: 272-278.

7) Sato T, IIDA M, YAMAGUCHI Y. A family with hereditary ankyloglossia complicated by heterochromia irides and a congenital clasped thumb. Int J Oral Surg. 1983; 12: 359-362.

8) 三好由利子, 井上伸吾, 東森秀年ほか. A-12. 舌小帯異常の多発した一家系の検討. 小児口腔外. 1998; 8: 53-54.

9) 雲丹亀真貴子, 川上哲司, 大槻榮人ほか. 姉妹に生じた舌小帯短縮症の2例. 小児口腔外. 2005; 15: 37-42.

10) 中野基, 矢野浩規, 安楽邦明ほか. 110. 舌小帯短縮症を合併した鰓・耳・腎症候群の兄弟例. 日頭顎顔会誌. 2007; 23: 144.

11) 尾崎絵美, 小林一夫, 平田礼二郎ほか. 1. 3世代にわたりみられた舌小帯短縮症. 愛媛医学. 2007; 26: 268.

12) Morowati S, Yasini M, Ranjbar R, et al. Familial Ankyloglossia (Tongue-tie): A Case Report. Acta Medica Iranica. 2010; 48: 123-124.

13) Han SH, Kim MC, Choi YS, et al. A Study on the Genetic Inheritance of Ankyloglossia Based on Pedigree Analysis. Arch Plast Surg. 2012; 39: 329-332.