軟口蓋神経鞘腫例

全 一¹⁾・村上 匡孝²⁾・福島 龍之¹⁾
牛嶋 千久³⁾・大西 弘剛⁴⁾・中野 宏⁵⁾

A Case of Schwannoma at the Soft Palate

Hajime Zen and Tatsuyuki Fukushima

(Shakaihoken Kobe Chuo Hospital)

Masataka Murakami

(Kyoto Prefectural University of Medicine)

Chihisa Ushijima

(Shakaihoken Kyoto Hospital)

Hirotsune Ohnishi

(Marutamachi Hospital)

Hiroshi Nakano

(Kyoto First Red Cross Hospital)

A case of schwannoma at the soft palate that puts into focus the problems of pre-operative diagnosis is reported.

The patient was a 23-year-old female with a 13-year history of a mass at the soft palate. First, we suspected pleomorphic adenoma. CT and MRI revealed compatibility with an image of schwannoma. The surface of the tumor was smooth, but we observed small development of ulceration, and therefore, we considered the possibility of a low grade malignant tumor. Each FNA that was performed 3 times was class I.

In the case of pleomorphic adenoma, we can diagnose its histological type at a considerably high rate of precision using FNA.

Deducing from the results of FNA, which was performed 3 times, and was in each case class I, along with the distinctive images obtained by CT and MRI, we should have suspected schwannoma from these observations.

Key words : schwannoma, soft palate, pleomorphic adenoma, FNA

はじめに

神経鞘腫は、神経鞘の Schwann 細胞に由来する良性腫瘍で、頭頸部領域は好発部位であるが、口蓋部に発生するのは比較的まれである。

今回、われわれは口臭を伴った軟口蓋神経鞘腫の1例を経験したので、術前診断の問題点を中心に、若干の文献的考察を加え報告する。

1) 社会保険神戸中央病院耳鼻咽喉科

3) 社会保険京都病院耳鼻咽喉科

5) 京都第一赤十字病院耳鼻咽喉科

2) 京都府立医科大学耳鼻咽喉科学教室

4) 丸太町病院耳鼻咽喉科

症 例

患者：23歳，女性．

主訴：軟口蓋腫瘍．

現病歴：10歳頃より，軟口蓋部の小指頭大腫瘍を自覚していたが，無症状のため放置していた．その後，徐々に増大し，口臭，咽頭異物感，構音障害を自覚するようになったため，平成7年12月8日，当科受診となった．

初診時現症：軟口蓋左側に3×3 cm 大の表面平滑，弾性硬，可動性良好な半球状腫瘍を認めた(図1)．鼻咽腔ファイバースコープでは，腫瘍は上咽頭に及んでおり，上咽頭側は一部，潰瘍状に深く陥凹していた．咽頭後壁との癒着は認めなかった．鼻腔底に異常を認めず，頸部リンパ節は触知しなかった．腫瘍を圧迫しても，圧痛その他の症状は認めなかった．

CT 所見：中～上咽頭に及ぶ，辺縁に特に造影効果があり，内部やや不均一な腫瘍陰影を認めた(図2)．

MRI 所見：T1強調像では低信号(図3)，T2強調像では高信号で，内部不均一，一部境界不明瞭な腫瘍陰影を認めた(図4)．またGd-DTPAにて不均一な造影効果を認めた．

穿刺吸引細胞診(fine needle aspiration cytology：以

図1 初診時の咽頭所見

下，FNA と略す)所見：3回施行したが，いずれもclass I で，組織型の診断はつかなかった．

治療と経過：緩徐に成長することから，良性腫瘍を考え，軟口蓋という部位より，まず第一に多形腺腫を疑った．画像所見より神経鞘腫も考えたが，一方，潰瘍状の陥凹を認めるので，腺系の低悪性腫瘍の可能性も若干念頭に置いた．平成8年1月16日，全身麻酔下に，口内より摘出術を施行した．腫瘍は被膜を有しており，周囲組

図2 造影CT画像

図3 MRI T1 強調画像

図4 MRI T2 強調画像

図5 摘出腫瘍の断面所見

織との剥離は容易であったが、潰瘍状に陥凹している部位の周辺は、可及的に軟口蓋粘膜を腫瘍につけるようにして一塊に摘出した。腫瘍に連続する明らかな索状物は認めなかった。術後、嚥下障害や明らかな神経脱落症状は認めず、術前認めた構音障害、口臭も消失した。現在まで再発は認めていない。

摘出物所見：大きさは、 $25 \times 25 \times 30$ mm、表面平滑で被膜に覆われた弾性硬の腫瘍で、断面は灰白色、充実性だが、一部嚢胞変性した部分が自壊し、上咽頭側に開口し、感染を伴い悪臭を認めた(図5)。

病理組織所見：HE 染色では、結合組織性の被膜に覆われ、一部、潰瘍形成している部位は、著明な好中球の浸潤を認めた。内部は紡錘形の細胞で満たされており、一部核が柵状に配列するいわゆる palisading を呈して

図6 病理組織所見(HE 染色, $\times 200$)

いる(図6)。免疫組織化学染色では S-100 蛋白陽性で、Antoni A 型の神経鞘腫と診断された。

考 察

神経鞘腫は、神経鞘の Schwann 細胞に由来する良性腫瘍で、遠城寺ら¹⁾によると、良性軟部組織腫瘍の中で、血管腫、脂肪腫に次いで高い発生率を示している。頭頸部領域は好発部位で(すべての神経鞘腫の25~35%²³⁾、側頸部、聴神経に多い。顎・口腔・咽頭領域に限ると、口蓋部発生はまれで、Gallo ら⁴⁾の報告では、157例中、舌が71例で最も多く、口蓋は12例(7.6%)にすぎず、本邦でも、日野原ら⁵⁾は195例中5例(2.6%)、亀谷ら⁶⁾は108例中10例(9.3%)と報告している。

由来神経は、迷走神経、交感神経、腕神経叢、頸神経などが多いが、なかでも迷走神経が最も多いといわれている⁷⁾。本症例は明らかな神経脱落症状を認めないが、解剖学的に小口蓋神経の枝より発生したものと推定される。

年齢は30~40歳代に多い^{8)~10)}。本症例は23歳であるが、顎・口腔・咽頭領域に限れば、滝川ら¹¹⁾は平均29.9歳、Hatziotis ら¹²⁾は25.6歳と報告しており、他の部位に比べ、比較的若年層に多い。

画像所見は、造影 CT では、腫瘍周辺部がより強く造影される。MRI T1 強調像では、筋組織とほぼ同様の比較的低信号、T2 強調像では不均一な高信号で、Gd-DTPA にて良好に造影されるのが特徴である。また、造影効果は腫瘍全体に一樣にみられるのではなくて、細胞成分の多い部は強く、細胞成分の少ない部や出血、壊死、嚢胞変性部は弱い^{13)~15)}。本症例の画像所見もこれに合致している。

病理所見は、肉眼的には薄い被膜を持つ境界明瞭な灰白色の腫瘍で嚢胞を伴うこともある。組織学的には腫瘍細胞は紡錘形で異型性に乏しく、束状、渦巻き状配列を示し、核が横一列に柵状(nuclear palisading)を示すのが特徴的である。細胞成分が密な Antoni A 型と粘液腫様間質の中に腫瘍細胞が粗に配列する Antoni B 型に分けられる¹⁶⁾。

本症例は、特徴的な画像所見を呈しているにもかかわらず、術前に神経鞘腫と診断できなかった要因として、①部位 ②腫瘍表面の潰瘍形成 ③FNA 結果 ④生検の未施行が挙げられる。詳述すると、①については、前述の通り、神経鞘腫の発生部位としてはまれであること

から、まず第一に多形腺腫を疑った。②を認めるために、腺系の低悪性腫瘍も若干念頭に置いた。しかし、軟口蓋は運動し嚥下圧のかかる部位であるので、良性腫瘍でも腫瘍表面が自壊し潰瘍形成することは十分考えられる。術前、口臭を認めたのは、潰瘍形成した部位に感染が伴っていたためと思われる。④の理由は、多形腺腫は細胞播種の危険性があり、また、腺系の低悪性腫瘍も若干疑ったため、生検はなるべく回避すべきと考えたからである。③は3回施行したにもかかわらず、診断するに足る腫瘍細胞を採取できなかった。これはFNAの技術的な問題も考えられる。真鍋ら¹⁷⁾の報告では、FNAを施行した神経鞘腫50例中、class I 20%、class II 68%、class III 10%、class IV 2%で、class IIが最も多い。しかしながら、元来、良性腫瘍、特に線維性腫瘍や神経原性腫瘍のように、間質成分の多い硬い腫瘍では細胞間が強く結合しており、腫瘍細胞は採取されにくい。神経鞘腫は嚢胞変性している部分を有する場合もあり、さらに採取困難である。神経鞘腫の細胞診は、その細胞の配列により、他の紡錘形細胞を示す腫瘍(神経線維腫、平滑筋肉腫、悪性線維性組織球腫、線維肉腫、滑膜肉腫、粘液腫、デスマイドなど)との鑑別も含め、組織型、良・悪性を判定するので、十分な腫瘍細胞が採取できないと診断は困難である¹⁸⁾。それと比較し、多形腺腫のFNAによる組織型の診断率は、林崎ら¹⁹⁾は96.6%(84/87)、O'Dwyerら²⁰⁾は89.5%(153/171)、Frableら²¹⁾は97.9%(95/97)と、かなり高率である。このようなFNAの特徴をふまえると、3回施行しいずれもclass Iという結果は、特徴的な画像所見と合わせ、むしろ神経鞘腫を疑わせる所見としてとらえるべきではなかったかと考えている。

まとめ

23歳女性の軟口蓋に生じた神経鞘腫の1例を経験したので報告した。

発生部位より、多形腺腫など腺系の良性腫瘍を疑う症例で、複数回のFNAでも十分な腫瘍細胞が採取できない場合は、画像所見が合致していれば、神経鞘腫を十分念頭に置く必要があると考えた。

本論文の要旨は、第63回日本耳鼻咽喉科学会京滋合同地方部会(平成8年2月、京都)、第9回日本口腔・咽頭科学会(平成8年9月、沖縄)において発表した。

最後に、本症例の術者で、平成8年2月急逝されました故・安田範夫博士から賜りました多大なる御指導、御助言に深謝するとともに、哀悼の意を表します。

参考文献

- 1) 遠城寺宗知, 岩崎 宏, 小松京子: わが国における良性軟部組織腫瘍 —8086例の統計的観察—. 癌の臨床 20: 594~609, 1974.
- 2) Conley JJ: Neurogenic tumors in the neck. Arch Otolaryngol 6: 167~180, 1955.
- 3) Putney FJ, Moran JJ and Thomas GK: Neurogenic tumors of the head and neck. Laryngoscope 74: 1037~1059, 1964.
- 4) Gallo WJ, Shapiro DN and Gaul JV: Neurilemoma; review of the literature and report of five cases. J Oral Surg 35: 235~236, 1977.
- 5) 日野原正, 宮下賢次, 古見充徳: 耳鼻咽喉科領域の神経鞘腫について. 耳展 13: 11~17, 1970.
- 6) 亀谷明秀, 中谷善幸, 小林明男, 他: 歯槽粘膜に発生した神経鞘腫の一例. 日口外誌 27: 263~271, 1981.
- 7) 平出文久, 西澤伸志: 神経系頸部腫瘍. 耳鼻咽喉科・頭頸部外科 Mook 2: 122~133, 1986.
- 8) Conley JJ: Neurilemoma of the head and neck. Trans Am Acad Ophthalmol Otolaryngol 80: 450~464, 1975.
- 9) 藤田健一郎, 加藤昭彦, 間島雄一, 他: 翼口蓋窩に発生した巨大神経鞘腫の一症例. 耳喉頭頸 66: 899~903, 1994.
- 10) 木田 亮, 藤井まゆみ, 穴澤卯恭, 他: 頸部の迷走神経鞘腫 —症例報告と本邦例の集計—. 耳鼻臨床 83: 275~286, 1990.
- 11) 滝川富雄, 阿部正彦, 須川委決, 他: 小児の口蓋に生じた神経鞘腫の一例. 日大歯学 44: 9~14, 1970.
- 12) Hatziotis JC and Asprides H: Neurilemoma (Schwannoma) of the oral cavity. Oral Surg 32: 900~909, 1971.
- 13) 黒崎喜久, 海老原玲子, 倉本憲明: 頭頸部神経原性腫瘍の画像診断. 臨放 38: 1099~1105, 1993.
- 14) 緒方憲久, 鮫島靖浩, 増山敬祐, 他: 診断にMRIが有用であった頭頸部神経鞘腫の二例. 耳鼻 42: 242~247, 1996.
- 15) Schroth G, Thron A, Guhl L, et al: Magnetic resonance imaging of spinal meningiomas and neurinomas. J Neurosurg 66: 695, 1987.
- 16) 鐵原沢雄, 有光佳苗, 広川満良: 神経鞘腫の細胞像. 日臨細胞 38: 45~49, 1999.
- 17) 真鍋 淳, 川口智義, 網野勝久, 他: 末梢神経 Schwannoma 105例の臨床病理学的検討. 臨整外 22: 1035~1046, 1987.
- 18) 木原圭一, 中之坊学, 松永 毅, 他: 穿刺吸引細胞診の検討. 耳鼻臨床 91: 1283~1287, 1998.

- 19) 林崎勝武, 角南滋子 : 耳下腺多形腺腫の穿刺吸引細胞診.
JOHNS **13** : 51~56, 1997.
- 20) O'Dwyer P, Farrar WB, James AG, et al : Needle aspiration biopsy of major salivary gland tumors ; it's value.
Cancer **57** : 554~557, 1986.
- 21) Frable MAS and Frable WJ : Fine-needle aspiration biopsy of salivary glands. Laryngoscope **101** : 245~249, 1991.

原稿受付 : 平成11年10月28日
原稿採扱 : 平成11年12月 1 日
別刷請求先 : 全 一
〒651-1145 神戸市北区惣山町2-1-1
社会保険神戸中央病院耳鼻咽喉科