小児にみられた舌根部神経鞘腫例

後藤 孝¹⁾³⁾・渡邊 昭仁¹⁾・川堀 眞一¹⁾
藤村 裕²⁾・原渕 保明³⁾

Childhood Neurilemmoma of the Base of Tongue ; A Case Report

Takashi Goto, Akihito Watanabe and Shinichi Kawabori

(Keiyukai Sapporo Hospital)

Yutaka Fujimura

(Fujimura Ear Nose Throat Clinic)

Yasuaki Harabuchi

(Asahikawa Medical School)

Neurilemmoma (schwannoma) is frequently located in the head and neck, but is relatively rare at the base of tongue.

We treated a 6-year-old boy with schwannoma at the base of tongue. Extirpation of the tumor was performed by the oral approach. A histopathological study revealed diagnosis neurilemmoma including both Antoni type A and B regions. He had no lingual paralysis or taste loss after the surgery. The origin of the nerve could not be identified. A review of the literature disclosed 30 cases of this tumor. We conclude that it is important to be aware of this tumor when we are diagnosing oral tumors in children. The clinical features of this tumor were discussed.

Key words : childhood, neurilemmoma, base of tongue, clinical features

はじめに

神経鞘腫は、シュワン細胞に由来する外胚葉系の良性腫瘍で頭頸部、後縦隔、後腹膜等に好発する。頭頸部領域においては半数が頸部に発生し、口腔内にみられるものはまれであるが、そのなかでは舌に発生する頻度が高いと報告されている^{1)~4)}。

今回筆者らは6歳小児の舌根部に発生した神経鞘腫例を経験したので、本邦における舌根部に発生した神経鞘腫の報告例に自験例を加え報告する。

症 例

患者：6歳、男児。

主訴：舌の違和感。

現病歴：2週間前より食事の際に舌の違和感があり、某耳鼻咽喉科を受診した。生検の結果、神経鞘腫であり、手術目的で当科紹介となった。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：5歳時に漏斗胸の手術を受けている。

現症：舌有郭乳頭より喉頭側で、正中より右側に正常粘膜で覆われた表面平滑な5×7mm大の外向性腫瘤を認めた(図1)。触診上、弾性軟で圧痛はなく、硬結も認めなかった。味覚、舌運動の障害はなかった。

手術所見：平成10年9月全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。舌を前方に引き出し、腫瘍を明視下におき接触

1) 恵佑会札幌病院耳鼻咽喉科

2) 藤村耳鼻咽喉科クリニック(札幌市)

3) 旭川医科大学耳鼻咽喉科学教室

図1 舌有郭乳頭より喉頭側で、正常粘膜で覆われた表面平滑な5×7 mm 大の外向性腫瘍を認める。

型 YAG レーザーにて周辺組織を一部つけ摘出した。由来神経の確認はできなかった。

摘出標本：5×7 mm 大の表面平滑な腫瘍で、薄い被膜で包まれていた。断面は灰白色均一、充実性であったが、一部嚢胞状で軟らかい部分を認めた。腫瘍に連続す

図2 摘出標本
5×7 mm 大の腫瘍で、薄い被膜で包まれている。

る索状物は認めなかった(図2)。

病理所見：卵円形ないし楕円形の核を持つ紡錘形細胞が密に束状になって錯走する細胞度の高いいわゆる Antoni A の部分(図3-a)と粘液腫様の間質内にレース状のつながりをもって疎に分布する Antoni B の部分(図3-b)からなっていた。これらの腫瘍細胞は、S-100 蛋白陽性を示した(図3-c)。以上より神経鞘腫 Antoni AB 混合型と診断した。

手術翌日には退院し外来にて経過観察中である。術後1年6カ月経過したが、味覚、舌の運動障害はなく経過良好である。

考 察

神経鞘腫はシュワン細胞に由来する外胚葉系の良性腫瘍で頭頸部、後縦隔、後腹膜等に好発する。遠城寺ら¹⁾の報告では、本腫瘍825例中242例(29%)が頭頸部領域に発生するが、口腔内にみられるものは34例(4%)とその頻度は低くまれである。黒川ら²⁾は、口腔領域の神経鞘腫216例のうち76例(35%)、Gallo ら³⁾は157例のうち71例(45%)、亀谷ら⁴⁾は109例のうち50例(46%)が舌に発生すると報告し、口腔領域の中では舌に発生する頻度が最も高いと述べている。久我ら⁵⁾は本邦における舌神経鞘腫142例をまとめ、舌背、舌尖、舌縁、舌根、舌下の各部位での発生頻度はいずれも約20%で、均等であったと報告している。

本邦における舌根部に発生する神経鞘腫は筆者らが渉猟し得た範囲で30例^{6)~34)}あり、筆者らの報告が31例目であり、6歳の本症例は本邦最年少であった(表1)。これら31例の検討では男女比17:14ではほぼ同程度であり、年齢は6~81歳の平均31歳で10代、20代で60%を占めていた(図4)。遠城寺ら¹⁾の全神経鞘腫の統計の平均は42歳で、20~40代に多く認めた報告と比べ若年者に好発しているのが特徴といえる。

主訴は偶然発見された例が2例のみで、その他は異物感、違和感、腫脹など嚥下に関係する症状が多く、ほかの部位より早期から自覚症状が出現し発見されやすいと思われる。

腫瘍の大きさは30 mm 前後のものが多く、筆者らの症例は5×7 mm と最も小さかった(表1)。本腫瘍は組織学的には、腫瘍細胞の楕円形あるいは紡錘形の核が、繊維束と平行に並び、有核帯と無核帯に分かれて配列する、いわゆる核の柵状配列(palisading pattern)または

図3 病理組織像(HE 染色)

(a)×10, (b)×50: Antoni A と Antoni B が混在.
(c)×50: 腫瘍細胞は S-100 蛋白陽性を示す.

図4 舌根部神経鞘腫30例の年齢分布

観兵式配列 (parading pattern) をとる Antoni A と、粘液腫状で小嚢胞腔を取り囲んで変性を伴った不規則な細網繊維網を形成する Antoni B が存在する. 自験例を含めた本邦31例のうち記載のあった25例では, Antoni A が14例, Antoni B が2例, 両者の混合型の Antoni AB が9例であり Antoni A を多く認めた(表1).

舌神経鞘腫はその由来神経として三叉神経, 舌咽神経, 迷走神経, 舌下神経, 鼓索神経が考えられるが, 由来神経の同定がなされた報告は1例もなく, 本症例においても術後の味覚低下, 舌運動障害などの神経脱落症状は認めず, 嚥下, 構音障害もないことから発生母地は不明である.

治療に関しては口内法, 頸部外切開による手術的切除がなされており全例再発の報告は認めない. 30例の中では上記の方法以外に下顎骨離断術が施行された症例⁽²³⁾⁽³⁰⁾も認めた. 本症例は舌を前方に引き出すことで腫瘍が明視下になったため, 口内法で摘出可能であった.

臨床的に外来受診時に神経鞘腫と診断できることは少なく, 生検を含めた外科的切除によりなされるが, 鑑別診断として舌根部に腫瘍性病変を認めた場合は以下の疾患に留意すべきである. 良性腫瘍としては乳頭腫, 脂肪腫, 線維腫, 血管腫, リンパ管腫, 平滑筋腫などが認められ, 悪性のものとして扁平上皮癌, 腺様嚢胞癌, 粘液表皮癌, 悪性リンパ腫が舌根部に発生しうる⁽³⁵⁾. またまれではあるが, 異所性甲状腺腫, アミロイドーシスもみられることがあり慎重な診察が必要である. 神経鞘腫は通常, 表面平滑で正常の粘膜に覆われているが, 表面に白色痂皮や潰瘍を伴っていることもあり⁽¹⁹⁾, 悪性腫瘍との鑑別が困難な時もある.

一方, 小児において口腔腫瘍は, 約9割が良性腫瘍を

表 1 本邦における舌根部神経鞘腫の報告例

	発表者	報告年	年齢	性別	主 訴	大きさ (cm)	組織型
1	沖田 ⁶⁾	1936	19	男	舌腫脹, 異物感	胡桃大	AB
2	六嶋 ⁷⁾	1939	28	女	舌根部腫脹	鶏卵大	A
3	須藤 ⁸⁾	1951	26	男	舌根腫脹	3.0×2.5×2.0	
4	木村ら ⁹⁾	1961	40	女	発声障害, 嚥下困難	4.2×3.7	
5	野坂ら ¹⁰⁾	1962	65	女		2.9×2.5×2.4	A
6	野中 ¹¹⁾	1964	15	男		径1.5	B
7	梅田ら ¹²⁾	1967	22	女			
8	柿市ら ¹³⁾	1968	13	女	腫脹, 疼痛	3.0×3.0×2.5	A
9	佐藤 ¹⁴⁾	1968	18	男	舌腫脹	1.5×1.6	
10	山川ら ¹⁵⁾	1971	25	女	異物感	1.0×2.3×1.3	A
11	小泉ら ¹⁶⁾	1977	59	男	舌腫脹, 異物感	3.2×2.3×2.0	AB
12	本河 ¹⁷⁾	1978	22	男	咽頭痛腫脹	1.5×1.0×1.0	A
13	新川ら ¹⁸⁾	1983	81	男	咽頭痛, 嚥下困難	3.0×3.0×3.0	B
14	石川ら ¹⁹⁾	1984	24	女	咽頭痛	2.0×2.0×1.5	A
15	丹波ら ²⁰⁾	1986	14	女	健康診断で	3.0×2.5×2.5	A
16	土屋ら ²¹⁾	1987	17	女	舌根部腫瘤	小鶏卵大	
17	勝見ら ²²⁾	1989		女			A
18	南ら ²³⁾	1990	29	男	左下顎部の腫脹	4.0×4.5×6.0	A
19	関ら ²⁴⁾	1990	49	男	嗄声, 嚥下痛	5.5×4.5×4.0	AB
20	竹野ら ²⁵⁾	1991	17	男	咽頭違和感	3.0×2.5×2.0	A
21	真崎ら ²⁶⁾	1992	49	男	嗄声, 嚥下痛		AB
22	真崎ら ²⁶⁾	1992	59	女	咽頭異常感, 発声障害		AB
23	藤木ら ²⁷⁾	1993	28	女	耳鼻科で偶然	1.8×1.0×1.6	A
24	林ら ²⁸⁾	1993	25	男	舌根部違和感	3.0×3.0×2.0	A
25	山本ら ²⁹⁾	1993	37	男	嚥下時違和感	1.1×1.0×0.5	A
26	岸本ら ³⁰⁾	1993	34	女	左下顎部腫脹	6.7×4.2×3.1	
27	岩本ら ³¹⁾	1995	37	女	舌根部違和感	7.0×3.5×2.5	AB
28	平野ら ³²⁾	1995	26	男	嚥下時違和感	2.7×1.8×1.3	AB
29	黄ら ³³⁾	1995	30	男	舌根部腫瘤	2.5×2.5	A
30	佐々木ら ³⁴⁾	1997	17	男	舌根部腫瘤	3.5×3.0×3.0	AB
31	自験例	2001	6	男	舌違和感	0.5×0.7	AB

占め³⁶⁾, 血管, リンパ管由来の先天性腫瘍が27%, 線維腫が15%, 歯原性が15%とされる. そのなかでも神経鞘腫はきわめてまれであるが, 本症例のように小児, 若年者で舌根部に腫瘤をみたときには神経鞘腫を常に念頭におくべき疾患と考えられた.

ま と め

1. 比較的まれな舌根部神経鞘腫の6歳小児例を経験した.
2. 自験例を含め本邦報告例31例を検討した. 舌神経鞘腫は若年者に比較的多くみられ, 本症例は最小年齢で

最小サイズであった。

3. 外科的な切除で良好な結果であった。

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) 黒川英雄, 都留昭二, 杉本忠雄, 他: 神経鞘腫の5例. 日口外誌 36 : 1764~1775, 1990.
- 3) Gallo WJ, Moss M, Shapiro DN, et al : Neurilemmoma ; review of the literature and report of five cases. J Oral Surg 35 : 235~236, 1977.
- 4) 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1例. 日口外誌 27 : 263~271, 1981.
- 5) 久我むつみ, 遠藤壮平, 山田洋一郎, 他: 舌神経鞘腫例. 耳鼻臨床 88 : 891~898, 1995.
- 6) 沖田桂治: 舌の良性腫瘍(第2回報告). 東北医誌 19 : 17~22, 1936.
- 7) 六嶋慎一: ノイリノームに関する総説並びに舌に発生せるその一例. 耳喉 12 : 851~859, 1939.
- 8) 須藤吾之助: 左舌根部ノイリノームの1例. 日耳鼻 54 : 549, 1951.
- 9) 木村友七, 浅野泰彦: 舌に発生した神経鞘腫の2例. 口科誌 10 : 190~194, 1961.
- 10) 野坂保次, 鳥谷宏三: 舌根部に発生した多発性ノイリノーム. 日耳鼻 65 : 902, 1962.
- 11) 野中兼男: 舌ノイリノーム症例. 日耳鼻 67 : 1649, 1964.
- 12) 梅田良三, 小西武彦, 石政喜弘, 他: 最近わが領域で経験した神経鞘腫の数例. 日耳鼻 70 : 865, 1967.
- 13) 柿市利男, 大橋 靖, 増田正樹, 他: 舌に発生した神経鞘腫の2例. 日病誌 35 : 376~383, 1968.
- 14) 佐藤忠四郎: 舌に発生した神経原腫瘍の2例. 医療 増刊 21 : 386, 1968.
- 15) 山川強四郎, 難波 仁, 大井糸子, 他: 舌神経鞘腫症例. 日耳鼻 74 : 1503, 1971.
- 16) 小泉 智, 山本香列, 河原田和夫: 舌根部 Neurinoma の1症例. 耳喉 49 : 587~590, 1977.
- 17) 本河一郎: 舌神経鞘腫の2症例. 耳展 21 : 175~178, 1978.
- 18) 新川 敦, 小松伸行, 三宅浩郷, 他: 舌根部正中に発生した神経鞘腫の1例. 耳鼻臨床 76 : 877~882, 1983.
- 19) 石川紀彦, 竹生田勝次: 舌根部神経鞘腫の1症例. 埼玉医誌 19 : 822~824, 1984.
- 20) 丹波一志, 林 美江, 桜井一生, 他: 舌根部に発生したノイリノームの1例. 日耳鼻 89 : 1103, 1986.
- 21) 土屋 浩, 増田隆夫: 舌根部に発生した大きな神経鞘腫の1例. 日口外誌 36 : 912~913, 1987.
- 22) 勝見容子, 桐山真樹, 岡部かよ子, 他: 舌に発生した神経鞘腫の3症例. 耳鼻臨床 補35 : 42~43, 1989.
- 23) 南 豊彦, 多田直樹, 綾仁信夫, 他: 呼吸困難を呈した巨大な舌根部神経鞘腫の1例. 耳鼻臨床 補40 : 19, 1990.
- 24) 関 豊彦, 山口龍二, 真崎正美, 他: 舌根部の神経鞘腫の1例. 日耳鼻 93 : 991, 1990.
- 25) 竹野幸夫, 原田康夫: 舌神経鞘腫の1例. 日咽科 4 : 85, 1991.
- 26) 真崎正美, 中島 康, 関 博之, 他: 舌根部神経鞘腫の2症例. 日咽科 4 : 71~76, 1992.
- 27) 藤木暢也, 野々村光栄, 小西保伯: 舌根部神経鞘腫例. 耳鼻臨床 86 : 1009~1012, 1993.
- 28) 林 琢己, 山本英一: 舌根部神経鞘腫. 耳喉頭頸 65 : 256~257, 1993.
- 29) 山本貴之, 梶 隆一, 榊 敏男, 他: 舌根に生じた神経鞘腫の1例. 日科誌 42 : 955, 1993.
- 30) 岸本誠司, 辻恒治郎: 舌根部神経鞘腫の1例(下顎舌正中断による全摘). 第3回日本頭頸部外科学会予稿集. 53頁, 1993.
- 31) 岩本純一, 藤野尚子, 細田岩雄: 舌根部神経鞘腫の1例. 日咽科 4 : 85, 1995.
- 32) 平野 隆, 鈴木正志, 黒野祐一, 他: 舌根部神経鞘腫の1例. 耳鼻臨床 補86 : 42, 1995.
- 33) 黄 淳一, 後藤 領, 藤森 功, 他: 口腔咽頭領域に発生した神経鞘腫の3症例. 耳鼻臨床 補79 : 12~16, 1995.
- 34) 佐々木邦, 谷垣内由之, 馬場廣太郎: 舌根部神経鞘腫の1例. 日咽科 10 : 75, 1997.
- 35) 吉原俊雄: 舌根部の腫瘍と腫脹. JOHNS 7 : 1287~1291, 1991.
- 36) Bhaskar SN : Oral tumors of infancy and childhood. J Pediatr 63 : 195, 1963.

(原稿受付:平成12年3月30日
原稿採択:平成12年6月21日
別刷請求先:後藤 孝
〒003-0027 札幌市白石区本通14丁目北1-1
恵佑会札幌病院耳鼻咽喉科)