耳下腺神経鞘腫の一症例と本邦報告例の検討

渡 邊 睦・相川 通・岡村 洋冲
大谷 巖・本田 学*・三沢 敬典*

Neurinoma in the Parotid Gland ; A Case Report and Statistical Review of the Japanese Literature

Mutsumi Watanabe, Tohru Aikawa, Hiro-oki Okamura and Iwao Ohtani
(Fukushima Medical Collage)

Manabu Honda and Takanori Misawa
(Ohta General Hospital)

A case of neurinoma located in the right parotid gland is reported. The patient was a 62-year-old Japanese woman complaining of a painless lump in the right parotid gland region. Clinical examination revealed a tumor mass in the deep lobe of the right parotid gland. Facial nerve function was normal. The tumor was extirpated and did not show any apparent connection with the facial nerve. Histopathological examination revealed neurinoma. Thirty-one cases of neurinoma in the parotid gland have been reported in the Japanese literature. These cases as well as the present case are reviewed.

Key words: neurinoma, parotid gland, statistical observation

はじめに

耳下腺に発生する腫瘍は病理組織学的に多彩である。その中でも、非上皮性腫瘍に属する神経鞘腫は、本邦では米倉の報告¹⁾以来30数例の報告が見られるにすぎない比較的なめな腫瘍である。今回われわれは、耳下腺神経鞘腫の一症例を経験したので、これまでの本邦報告例について併せて検討し報告する。

症 例

症 例：62歳，女性。

主 訴：右耳下腺部腫脹。

既往歴：30歳代より右慢性中耳炎。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和63年4月頃より、右耳下腺部腫脹が出現し近医を受診した。腫脹が改善しないため、同年12月2日太田綜合病院耳鼻咽喉科を受診した。

初診時局所所見：右耳下腺部に 45 mm×50 mm の腫瘍が認められた。表面は平滑、弾性硬で圧痛はなく、境界明瞭で可動性があり、皮膚との癒着は認められなかった。耳鏡所見にて右鼓膜に穿孔を認めたが、鼻咽喉頭には異常所見は認められなかった。顔面神経麻痺はなく、頸部リンパ節も触知しなかった。

福島県立医科大学耳鼻咽喉科学教室（主任：大谷 巖教授）

* 太田綜合病院耳鼻咽喉科

検査所見：Sialo CT 軸位断で右耳下腺深葉部に境界明瞭で円形の腫瘍陰影を認めた（図1）。内部性状の鑑別はできなかった。Ga シンチでは異常な集積は見られなかった。以上の諸

図1 Sialo CT 軸位断

右耳下腺深葉部に境界明瞭で円形の腫瘍陰影（矢印）が認められる。

図2 術中所見

腫瘍とその表面を走行する顔面神経（矢印）が認められる。

検査より耳下腺深葉に発生した良性腫瘍と診断、手術を勧めたが、本人の同意を得るまでに約10ヵ月外来にて経過を観察した。この間腫瘍に変化はなかった。平成元年10月25日、全身麻酔下に右耳下腺腫瘍摘出術を施行した。

手術所見：皮切は右側耳前部より下顎後方を通り側頸部に達する逆S字状切開とした。顔面神経を確認しつつ耳下腺浅葉組織を剥離すると、顔面神経分岐部の下に被膜を有するくるみ大の球形の腫瘍を認めた（図2）。腫瘍は嚢胞様に弾力に富み、術中迅速病理検査のために被膜の一部を切開すると、内部より血性の内容物の流出がみられた。病理検査の結果は神経鞘腫と診断された。顔面神経は伸展し、腫瘍を放射状に取り巻く様に走行していたが腫瘍と顔面神経の間には明らかな癒着はなかった。神経を慎重に腫瘍から剥離し、腫瘍の内容物の一部を減量した後に被膜外にて腫瘍を摘出した。摘出後、腫瘍の圧迫のため顔面神経の頬骨枝、頬筋枝の過伸展が確認された。

病理組織所見：楕円形核を有する Spindle cell の、車軸状・柵状に配列した増生が認められ（図3）、Antoni A type の神経鞘腫と診断された。

術後経過：術後3日目より右顔面神経麻痺が出現したが、およそ3ヵ月後に麻痺はほぼ完全

図3 病理所見

楕円形の核を有する spindle cell の柵状増生が認められ、Antoni A type の神経鞘腫と診断された。

に回復した。

考 察

神経鞘腫は神経鞘由来の良性腫瘍で、文献上 schwannoma, neurinoma, neurilemmoma などと呼ばれるが、これらは概念的に同一範疇に属するものと考えられている。また、同じく Schwann 細胞に由来する神経線維腫とも本質的には同一のものとされている。

その発生頻度は日野原³⁾の本邦195例をまとめた報告によると、約半数が脊髄から、25%が小脳橋角部から、10%が舌、胃腸管、縦隔洞、四肢屈側、軀幹皮下に発生し、耳下腺由来のものは2例にすぎない。欧米での Das Gupta⁴⁾の頭頸部領域の136例の報告でも頸部が約半数を占め、耳下腺由来の神経鞘腫は10例と稀である。

一方、耳下腺腫瘍中での神経鞘腫の頻度は、表1のごとく、本邦、欧米の報告ともに低い。本邦における耳下腺神経鞘腫の報告例は、われわれの渉猟し得た範囲では、本症例を含めて32例であり稀なものといえる。その詳細は表2および表3に示した。

1. 年齢：12歳から62歳までに分布し、本症例は本邦の報告のうち最も高齢であった。年齢の記載のある24例の平均は40.3歳（男性38.0歳、女性41.1歳）であった。本邦の耳下腺神経鞘腫

の好発年齢は40歳代といわれており、中年層に多いといえる。

2. 性別：耳下腺良性腫瘍が女性に多いのと同様に神経鞘腫においても男性：女性＝約1：3で女性に多くなっている。これは、耳下腺内神経鞘腫6例のうち5例が女性であったという Roos ら⁴³⁾の報告と一致している。なかでも特に40歳代と50歳代の女性が約半数を占めている。

3. 初発症状：記載のあった25例中20例（80%）が耳下腺部およびその周囲の腫脹または腫瘤を初発症状としており、顔面神経麻痺を初発症状とした例は3例（12%）に過ぎなかった。

4. 初診時の腫瘍の性状：記載のあった全ての症例で表面が平滑であり、癒着は18例中1例（5.6%）でみられた。これは他の耳下腺良性腫瘍における癒着の頻度（加納⁸⁾ 9.1%、寺倉¹¹⁾ 5.3%）と差異は認められなかった。自発痛、圧痛は15例中4例（27%）で認められ、他の耳下腺良性腫瘍（杉本⁷⁾ 5.1%、加納⁸⁾ 10.7%、寺倉¹¹⁾ 5.3%）に比べて高い頻度でみられた。

5. 来院までの期間：1カ月から20年と幅広く分布しているが、総じて年単位の症例が多い。これは本腫瘍の発育が緩徐であり、耳下腺部腫脹の他に臨床症状を呈するまでに長時間かかるためであろうと考えられる。さらに、本症例の

表1 報告例にみる耳下腺腫瘍中の神経鞘腫の頻度

北村	村 ⁵⁾	(1971)	7例	／ 207例	3.4%
村上	上 ⁶⁾	(1976)	0例	／ 70例	0%
杉本	本 ⁷⁾	(1981)	1例	／ 83例	1.2%
加納	納 ⁸⁾	(1982)	1例	／ 86例	1.2%
有馬	馬 ⁹⁾	(1982)	0例	／ 74例	0%
金子	子 ¹⁰⁾	(1985)	8例	／ 340例	2.4%
寺倉	倉 ¹¹⁾	(1988)	1例	／ 117例	0.85%
井上	上 ¹²⁾	(1989)	0例	／ 211例	0%
Kirklin	¹³⁾	(1951)	1例	／ 709例	0.14%
Eneroth	¹⁴⁾	(1964)	2例	／ 802例	0.25%
Eddey	¹⁵⁾	(1970)	1例	／ 138例	0.72%
Nussbaum	¹⁶⁾	(1976)	1例	／ 700例	0.14%
Sharkey	¹⁷⁾	(1977)	0例	／ 355例	0%
Balle	¹⁸⁾	(1984)	2例	／ 142例	1.4%

ように来院後も自覚症状がないことから、手術に同意せず長時間放置している例も多くある。

6. 顔面神経麻痺: Bretlau⁴⁴⁾は耳下腺内神経鞘腫の20%に、Kavanagh⁴⁵⁾は32例中8例(25%)に顔面神経管麻痺を認めたと報告しており、本邦においても28例中9例(32%)に顔面神経麻痺が認められた。しかしながら、腫瘍の位置が明らかな7例のうち6例までは腫瘍が

耳下腺内だけでなく顔面神経管垂直部にも存在しており、腫瘍が耳下腺内に限局した症例で顔面神経麻痺を呈したものは16例中1例(6.3%)にすぎなかった。これは耳下腺の良性腫瘍における顔面神経麻痺の頻度(杉本⁷⁾ 6.8%, 加納⁸⁾ 3.6%)に近い値である。このことから、腫瘍の位置、特に顔面神経管垂直部に腫瘍が存在するか否かが顔面神経麻痺の出現に大きく関与し

表2 本邦における耳下腺内神経鞘腫の報告例

No.	報告者	年	年齢	性	初発症状	腫瘍の性状			顔面神経麻痺	来院までの期間	部位	多発性	顔面神経垂直部の合併	術後麻痺	発生母地
						表面	癒着	疼痛							
1	米倉 ¹⁾	1962													顔面神経
2	北村 ¹⁹⁾	1963	36	f	耳下腺部腫脹				—		右			—	
3	梅田 ²⁰⁾	1965	42	f	外耳道腫瘤				+	10年	右		+		
4	小倉 ²¹⁾	1966							+		右			+	
5	小出 ²²⁾	1966	54	f	耳下腺部腫脹	平滑	—	—	+	8年	左	+(5個)	+	+	顔面神経
6	梅田 ²³⁾	1967	12	f											
7	今野 ²⁴⁾	1970	27	f	耳下腺部腫瘍	平滑	—	圧痛	—	5ヵ月	左本幹		—	+	顔面神経
8	平出 ²⁵⁾	1974	41	f	耳下腺部腫脹	平滑	—	+	—	1ヵ月	右深葉			一過性	不明
9	北村 ²⁶⁾	1975	14	f							深葉				不明
10	黄川田 ²⁷⁾	1977	45	f	口角攣縮				+	6ヵ月	右本幹		+		顔面神経
11	猿田 ²⁸⁾	1)1978							—				—		顔面神経
12		2)1978							—				—		顔面神経
13	南 ²⁹⁾	1980	34	m	耳下腺部腫脹	平滑	—	—	—	5ヵ月	右深葉		—	一過性	不明
14	杉本 ⁷⁾	1981	50代	f											
15	加納 ⁸⁾	1)1982					+	—	+						
16		2)1982					—	—	—						
17	古川 ³⁰⁾	1983	42	m	耳下腺部腫脹	平滑	—	—	—	6ヵ月	左	+(3個)	—	—	顔面神経
18	宮原 ³¹⁾	1984	40	m	耳下腺部腫瘤	平滑	—	—	—	20年	右浅葉		—	—	不明
19	竹生田 ³²⁾	1984	43	f	耳前部腫瘤	平滑	—	+	—	9年	左両葉	+(4個)	—	+	顔面神経
20	湯本 ³²⁾	1984	59	f	耳下腺部腫脹	平滑			+	4年	右深葉		+		顔面神経
21	高岡 ³⁴⁾	1984	27	f	顔面神経麻痺	平滑	—		+	1年7ヵ月	右深葉		—		顔面神経
22	永井 ³⁵⁾	1985	39	f	耳下部腫瘤		—	+	—	10年	右深葉		—	+	顔面神経
23	池田 ³⁶⁾	1985	44	f	耳下腺部腫脹	平滑		—	—	3年	左深葉		—		顔面神経
24	古家 ³⁷⁾	1986	59	f	耳下腺部腫瘤	平滑			(+)	13年	右	+(4個)	+	+	顔面神経
25	後藤 ³⁸⁾	1987	45	f	耳下腺部腫瘤		—	—	—	3年	左本幹		—	+	顔面神経
26	長山 ³⁹⁾	1987	14	m	顔面神経麻痺				+	4年	右本幹		+	+	顔面神経
27	岡田 ⁴⁰⁾	1987	44	f	耳下腺部腫瘤	平滑	—		—	7ヵ月	左本幹		—	+	顔面神経
28	小島 ⁴¹⁾	1)1988	39	m	耳下腺部腫脹	平滑	—	—	—	1年2ヵ月	右深葉		—	+	顔面神経
29		2)1988	47	f	耳下腺部腫脹	平滑	—	—	—	4ヵ月	右本幹		—	+	顔面神経
30	関 ⁴²⁾	1988	59	m	耳下腺部腫脹	平滑	—	—	—		左深葉		—	+	顔面神経
31	寺倉 ¹¹⁾	1988					—		—						
32	本症例	1990	62	f	耳下腺部腫脹	平滑	—	—	—	3ヵ月	右深葉		—	一過性	不明

ているものと考えられる。本症例の場合にも腫瘍は耳下腺内に限局しており、顔面神経麻痺はみられなかった。

7. その他：左右差は右：左＝14：7と右に多い傾向がみられ、また、深葉及び顔面神経本幹にあるものが多いようであった。また多発例は4例であった。

8. 起源神経：本邦の報告で起源神経を顔面神経とした報告は24例中20例に達するが、その判断については明確な基準がないのが現状である。耳下腺には知覚神経の他、顔面神経、自律神経が存在しそのいずれもが神経鞘腫の起源神経となりうる。しかしながら、耳下腺神経鞘腫は解剖学的関係より、かつ、Schwann 鞘を例外なく随伴しているという事実より、その大部分が耳下腺内を走行する顔面神経由来であろうと推測され、腫瘍摘出にあたって、顔面神経と腫瘍に関係のないことが確認されていても摘出部位から考えて顔面神経由来の腫瘍と推測するのが一般的であるという²⁵⁾。また、知覚神経、自律神経に由来することが確認されたという報告はない。本症例の場合は、紙状に過伸展された神経が腫瘍表面を放射状に走行していたが両者の間に明らかな癒着はなく、顔面神経との関係は不明であった。

9. 診断：本邦において術前診断が正しくなされたという報告は1例もみられなかったが、欧米で術前診断が正しくなされた症例をBretlau⁴⁴⁾は52例中4例、Conley⁴⁶⁾は17例中3例報告している。このうち各々1例は吸引細胞

診によって術前診断がなされているが、本邦例では吸引細胞診が行われた症例はみられなかった。従来、本腫瘍に特徴とされている顔面神経麻痺は、今回、顔面神経管垂直部に腫瘍が存在しない場合には頻度的に他の良性腫瘍と差のないことが判明した。他の良性腫瘍に比べ頻度の高かった疼痛の出現も診断価値としては低いといわれている²⁵⁾。現在のところ診断は組織診断によらざるを得ない。

10. 治療：本腫瘍が限局性、単発性の良性腫瘍で放射線、化学療法に反応し難いことから治療は手術による摘出が原則である。術後に顔面神経麻痺を残した症例は18例中12例であり、一過性の麻痺は3例にみられた。術後麻痺を防止するために、顔面神経の走行に細心の注意を払い、損傷を避けることが必要となるが、癒着が著しかったり腫瘍が神経を包みこんでいる場合には切断を余儀なくされることがある。その際、顔面神経の機能を保存するために、切断した神経の端々吻合や大耳介神経などの移植が行われており、今野²⁴⁾、永井³⁵⁾により良好な成績が報告されている。

ま と め

耳下腺に発症した62歳女性の神経鞘腫を報告した。右耳下腺部膨脹を主訴とし、初診時に顔面神経麻痺は認められなかった。手術にて右耳下腺深葉の腫瘍を摘出した。病理診断は神経鞘腫であった。また、本邦における耳下腺内神経鞘腫の報告32例について検討を加えた。

表 3 本邦報告例の年齢別、性別分布

年 齢	男 性	女 性	計
1 0 ～ 1 9	1	2	3
2 0 ～ 2 9	0	2	2
3 0 ～ 3 9	2	2	4
4 0 ～ 4 9	2	8	1 0
5 0 ～ 5 9	1	4	5
6 0 ～	0	1	1
計	6	1 9	2 5
平 均	3 8 . 0 歳	4 1 . 1 歳	4 0 . 3 歳

本論文の一部は第46回日耳鼻福島県地方会において口演した。

参考文献

- 1) 米倉英明, 白木哲朗: 耳下腺部腫瘍2例. 日耳鼻 **65**: 613, 1962.
- 2) 赤崎兼義: 病理学総論. 468~469頁, 南山堂, 東京, 1981.
- 3) 日野原正, 宮下賢次, 吉見充徳: 耳鼻咽喉科領域の神経鞘腫について. 耳展 **13**: 11~17, 1970.
- 4) Das Gupta TK, Brasfield RD, Storong EW, et al: Benign salivary schwannomas. Cancer **24**: 355~366, 1969.
- 5) 北村 武, 金子敏郎, 戸川 清, 他: 耳下腺腫瘍の臨床—教室20年間の統計的観察—. 耳鼻臨床 **64**: 1286~1301, 1971.
- 6) 村上 泰, 猪 忠彦, 堀内正敏, 他: 耳下腺腫瘍70症例の治療経験. 耳喉 **48**: 589~602, 1976.
- 7) 杉本嘉朗, 平川勝洋, 夜陣紘治, 他: 耳下腺腫瘍の統計的観察—当教室過去13年間の集計—. 耳鼻臨床 **74**: 2096~2103, 1981.
- 8) 加納直行, 牧本一男, 藤村英一, 他: 過去10年間に於ける耳下腺腫瘍の統計. 耳鼻臨床 **75**: 1657~1666, 1982.
- 9) 有馬敏夫, 中島恒彦, 朝隈真一郎, 他: 当教室における過去10年間の耳下腺腫瘍の臨床統計. 耳鼻 **28**: 425~429, 1982.
- 10) 金子敏郎: 耳下腺腫瘍とその臨床—教室統計を中心として—. 耳鼻 **24**: 885~890, 1978.
- 11) 寺倉直明, 田中克彦, 吉村 理, 他: 耳下腺腫瘍の臨床統計—当教室10年間の集計—. 耳鼻 **34**: 698~702, 1988.
- 12) 井上俊哉, 山下敏夫, 辻川覚志, 他: 当教室10年間に於ける耳下腺腫瘍の統計. 耳鼻臨床 **82**: 245~250, 1989.
- 13) Kirklin JW, McDonald JR, Harrington SW, et al: Parotid tumors; Histopathology, clinical behavior and end results. Surg Gynecol Obstet **92**: 721~733, 1951.
- 14) Eneroth CM: Histological and clinical aspects of parotid tumors. Acta otol Suppl **191**: 1~99, 1964.
- 15) Eddey HH: Parotid tumors a review of 138 cases. Aust N Z J Surg **40**: 1~14, 1970.
- 16) Nussbaum M, Cho HT and Son ML: Parotid space Tumors of Non-salivary Origin. Ann Surg **183**: 10~12, 1976.
- 17) Sharkey FE: Systemic evaluation of the World Health Organization classification of salivary gland tumors. Am J Clin Pathol **67**: 272~278, 1977.
- 18) Balle VH and Greisen O: Neurilemmomas of the facial nerve presenting as parotid tumors. Ann Otol Rhinol Laryngol **93**: 70~72, 1984.
- 19) 北村 武, 武宮三三, 佐藤俊一: 耳下腺 Neurilemmoma. 日耳鼻 **66**: 1588, 1963.
- 20) 梅田良三, 中橋常雄, 宮崎為夫: 耳下部にみられたノイリノーム症例. 日耳鼻 **68**: 1158, 1965.
- 21) 小倉義郎, 安原皓三, 小野田元男: 耳下腺腫瘍摘出症例. 日耳鼻 **69**: 2117, 1966.
- 22) Koide Y, Takahashi H and Arai T: A cases of multiple neurinoma of the facial nerve. Laryngoscope **76**: 407~417, 1966.
- 23) 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.
- 24) 今野昭義, 北村 武, 戸川 清, 他: 顔面神経原発神経鞘腫の臨床的観察—4例の観察—. 日耳鼻 **73**: 379~388, 1970.
- 25) 平出文久, 野村恭也, 森田 守: 耳下腺ノイリノームの一症例. 耳鼻 **20**: 506~510, 1974.
- 26) 北村溥之, 宮本和雄, 岸本誠司, 他: 耳鼻咽喉科領域の神経鞘腫5例. 日耳鼻 **79**: 1044, 1976.
- 27) 黄川田 徹, 小林武夫, 野村恭也, 他: 顔面神経 Neuroma—3症例の報告—. 耳喉 **77**: 899~906, 1977.
- 28) 猿田敏行, 内藤準哉, 藤田洋祐, 他: 顔面神経鞘腫の3症例. 日耳鼻 **81**: 288, 1978.
- 29) 南 吉文, 平田秀登, 小田 澄, 他: 耳下腺ノイリノームの1症例. 耳喉 **52**: 605~608, 1980.
- 30) 古川 侃, 井本浩二, 石黒英世, 他: 顔面神経由来耳下腺内顔面神経鞘腫の一例. 耳展 **26**: 393~396, 1983.
- 31) 宮原 裕, 佐藤武男: 耳下腺 Neurilemmomaの一症例. 耳展 **27**: 407~410, 1984.
- 32) 竹生田勝次, 西嶋 渡, 寺邑公子: 耳下腺内顔面神経より生じた多発性神経鞘腫の一症例. 耳喉 **56**: 49~52, 1984.

- 33) 湯本英二, 柳原尚明, 丘村 熙: 顔面神経鞘腫 9 例—臨床像を中心に. 耳鼻臨床 77 : 1103~1109, 1984.
- 34) 高岡基雄, 鈴木健男, 稲賀 潔, 他: 顔面神経由来と思われた耳下腺 Neurinoma の一例. 耳鼻 30 : 373~377, 1984.
- 35) 永井みどり, 林 明俊, 東野哲也, 他: 耳下腺内に発生した顔面神経鞘腫症例. Facial N Res Jpn 5 : 153~156, 1985.
- 36) 池田直也, 二宮半三, 近藤豊一, 他: 耳下腺部に発生した巨大な神経鞘腫の一例. 歯放 25 : 301~306, 1985.
- 37) 古家隆雄, 高原哲夫, 藤谷哲三, 他: 多発性顔面神経鞘腫の一症例. Facial N Res Jpn 6 : 109~112, 1986.
- 38) 後藤和彦, 岡田益明, 佐々木良二, 他: 耳下腺内顔面神経鞘腫の一例. Facial N Res Jpn 7 : 123~126, 1987.
- 39) 長山郁夫, 嘉藤秀章, 岡部陽三, 他: 当教室における過去13年間の神経鞘腫例について. 耳展 30 : 47~53, 1987.
- 40) 岡田智幸, 岩沢 寛, 高橋馨子, 他: 顔面神経鞘腫の二例. 耳鼻臨床 補 9 : 85~95, 1987.
- 41) 小島 正, 志藤文明, 三部重雄: 耳下腺内顔面神経鞘腫の 2 例. 耳展 31 : 45~51, 1988.
- 42) 関 哲郎, 今井 透, 金子省三, 他: 耳下腺部顔面神経由来の神経原性腫瘍, 耳展 31 : 471~481, 1988.
- 43) Roos DB, Byards LT and Ackerman LV : Neurilemmomas of the facial nerve presenting parotid gland tumors. Ann Surg 144 : 258~262, 1956.
- 44) Bretlau P, Melchior H and Kroghdahl A : Intraparotid neurilemmoma. Acta Otolaryngol 95 : 382~384, 1983.
- 45) Kavanagh KT and Panje WR : Neurogenic Neoplasms of the Seventh Cranial Nerve Presenting as a Parotid Mass. Am J Otolaryngol 3 : 53~56, 1982.
- 46) Conley J and Janecka I : Neurilemmoma of the facial nerve. Plast Reconstr Surg 52 : 55~60, 1973.

(別刷請求先: 渡邊 睦
〒960-12 福島市光が丘1
福島県立医科大学耳鼻咽喉科学教室)