被膜の一部欠如を伴った顎骨内神経鞘腫の1例

勝田 秀行¹⁾・宮崎 裕明¹⁾・塩 竈 素直¹⁾
磯 部 友秀²⁾・入 江 太 朗²⁾・新 谷 悟¹⁾

A case of partially uncapsulated intraosseous schwannoma of the mandible

KATSUTA Hideyuki¹⁾・MIYAZAKI Hiroaki¹⁾・SHIOGAMA Sunao¹⁾
ISOBE Tomohide²⁾・IRIE Taro²⁾・SHINTANI Satoru¹⁾

Abstract: We report a rare case of intraosseous schwannoma in the mandible. The tumor was an elastic hard mass, associated with resorption of the mandible in the left second premolar region. The surgically removed tumor was a partially uncapsulated mass measuring 10 × 13 × 14mm in diameter. Histopathologically, the tumor showed typical features of Antoni type A schwannoma. Schwannoma is an encapsulated benign tumor originating from Schwann's cells of the neural sheath. It rarely occurs in the maxillofacial region, and uncapsulated intraosseous schwannomas involving the jaw are extremely rare. This article reviews and summarizes the mechanism and capsule loss of intraosseous schwannoma according to the literature.

Key words: schwannoma (神経鞘腫), intraosseous (顎骨内), partial uncapsulation (被膜の一部欠如), mandible (下顎骨)

緒 言

神経鞘腫は神経鞘のシュワン細胞の増殖から成る良性腫瘍である。顎口腔領域での発生は少なく、顎骨内に発生することはまれである。さらに顎骨内神経鞘腫はそのほとんどで被膜を有し、被膜が欠如することは非常にまれである¹⁾。今回われわれは、被膜を一部欠如した顎骨内神経鞘腫を経験したので報告する。

症 例

患 者: 38 歳, 男性。

初 診: 2010 年 11 月。

主 訴: 左側下顎小白歯歯肉部の腫脹。

既往歴・家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 左側下顎第二小白歯頬側歯肉に無痛性腫脹を自覚したため近歯科を受診し、精査・加療目的に当科受診となった。

現 症:

全身所見: 体格中等度, 全身状態良好。

口腔外所見: 特記事項なし。

口腔内所見: 左側第二小白歯の頬側歯肉粘膜下に弾性硬である 11 × 12mm 大の腫瘤を認め、この腫瘤の周囲に骨様硬の膨隆を触れた。さらに、左側下顎第一大臼歯頬側歯肉に内歯瘻を認めた(写真 1)。

画像所見: パノラマ X 線写真では左側下顎第一大臼歯根分岐部から近心根にかけて透過像を認めるのみで、左側下顎第二小白歯根周囲には透過像を認めなかった。

CT 画像では左側下顎第二小白歯頬側の骨が吸収していたが、左側下顎第二小白歯の歯根吸収は認めず、根尖との連続性も認めなかった(写真 2)。

臨床診断: 下顎骨腫瘍。

処置および経過: 2011 年 5 月局所麻酔下に下顎骨腫瘍摘出術および左側下顎第一大臼歯近心根分割抜歯術を施行した。

¹⁾ 昭和大学歯学部顎口腔疾患制御外科学講座
(主任: 新谷 悟教授)

²⁾ 昭和大学歯学部口腔病理学講座
(主任: 美島健二教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Showa University School of Dentistry (Chief: Prof. SHINTANI Satoru)

²⁾ Department of Oral Pathology, Showa University School of Dentistry (Chief: Prof. MISHIMA Kenji)

受付日: 2012 年 4 月 12 日

採択日: 2012 年 9 月 25 日

写真1 初診時口腔内写真
左側第二小白歯の頬側歯肉粘膜下に膨隆を認めた(矢印).

写真4 術中写真(摘出後)
左側第二小白歯歯根の露出を認めた(矢印).

写真2 CT写真
a: 冠状断 b: 前額断

写真5 摘出標本写真
a: 腫瘍の骨膜側には被膜を認めた,
b: 腫瘍の歯根側には被膜を認めなかった.

腫瘍は弾性硬で左側下顎第二小白歯の歯根と頬側骨膜の間に存在していたが、オトガイ神経との連続性は認めなかった(写真3)。頬側骨膜とは癒着を認めたため骨膜を一部含めて摘出した。左側下顎第一大臼歯根分岐部から近心根根尖にかけては不良肉芽を認めたため左側第一大臼歯近心根は分割抜去したが、腫瘍との連続性は認めなかった(写真4)。術後、左側下唇およびオトガイに知覚異常を認めなかった。術後1年5か月の経過観察の時点で、再発を認めていない。

摘出標本所見：摘出標本の肉眼的所見では、腫瘍は大きさが10×13×14mmの球形であり、左側下顎第二小白歯歯根および周囲骨に接する部分には被膜が存在せず、頬側骨膜と接する面のみ被膜が存在した(写真5a, b)。

病理組織学的所見：腫瘍細胞は類円形の核を有する紡錘形であり、細胞質は好酸性であった。軽度異型を認める細胞も存在するが、核分裂像はほとんど認めなかった。細胞密度は高く、一部に柵状配列を認めた(写真6a, b)。腫瘍の骨膜側には線維性結合組織による被膜を認めたが、左側下顎第二小白歯歯根および周囲骨と接する面には認めな

かった(写真6a, c, d)。

免疫組織化学的所見：腫瘍細胞はS-100蛋白強陽性、Vimentin陽性であり神経由来が示唆された(写真6e, f)。Ki-67は陰性であった。

病理組織学的診断：神経鞘腫 (Antoni A型)。

写真3 術中写真(摘出中)
腫瘍の歯根側には被膜を認めなかった。

写真6 病理組織写真

- a：腫瘍の骨膜側には線維性の被膜を認めたが、歯根側には認めなかった(図の左側が骨膜側、右側が歯根側)(H-E染色, ×12.5)。
- b：腫瘍は類円形の核を有する紡錘形細胞から成り、細胞密度は高く、一部に柵状配列を認めた (Antoni A型)(H-E染色, ×100)。
- c：腫瘍の骨膜側には線維性の被膜を認めた (H-E染色, ×40)。
- d：腫瘍の歯根側には線維性の被膜を認めなかった (H-E染色, ×40)。
- e：S-100蛋白強陽性 (×100)。
- f：Vimentin陽性 (×100)。

考 察

神経鞘腫はシュワン細胞の増殖と膠原線維性基質からなる、被膜をもつ境界明瞭な良性腫瘍である²⁾。発生部位は脊髄が50%を占め、聴神経が30%、末梢神経が20%と報告されている^{3,4)}。顎口腔領域での発生は少なく、その35～45%が舌に発生している^{5,6)}。下顎骨に発生する神経鞘腫は顎口腔領域に生じる神経鞘腫の約10%であり^{6,7)}、顎骨内に発生する良性腫瘍の1%以下というまれな疾患である⁸⁾。臨床症状としては、腫脹が一番多く、疼痛や知覚異常は約半分に生じる⁵⁾。発生頻度としては、男女比が1:1.6で女性の発生頻度が高い。発生年齢は50歳以下で77%、30歳以下で46%となっている¹⁾。

病理組織学的には束状型であるAntoni A型と網状型であるAntoni B型に2大別されるが、黒川ら⁷⁾によるとAntoni A型が60.9%、Antoni B型が4.7%、Antoni AB混在型が34.4%あったと報告されている。

パノラマX線写真では、単胞性または多胞性の境界明瞭な透過像を示し、歯根嚢胞や歯周嚢胞、角化嚢胞性歯肉性腫瘍、エナメル上皮腫などが鑑別診断として考えられる⁹⁾。村山ら¹⁰⁾によると、下顎内に発生した神経鞘腫14例の治療法としては、2例で区域切除術が施行され、残りの12例では腫瘍摘出術が施行されている。同報告では、14例中13例が下歯槽神経と関係しており、神経と関係していなかったものは1例であった。

本症例では、S-100蛋白強陽性であり、細胞密度が高く、一部に柵状配列を認めたため、神経線維腫ではなく神経鞘腫と考えられた。さらに、一部被膜を欠如していたが、一部細胞に軽度の異型を認めるのみで、核分裂像もほとんど認めず、Ki-67も陰性のためmalignant peripheral nerve sheath tumorは否定され、病理組織学的に神経鞘腫と診断した。さらに、腫瘍は左側下顎第二小臼歯歯根から頬側骨膜間に存在しており、顎骨内神経鞘腫と考えられるが、下歯槽神経およびオトガイ神経との連続性および癒着を認めず明らかな発生神経を確認できなかった。骨内神経鞘腫には、1. 骨内の栄養管から発生し、栄養管を拡大する。2. 栄養管以外の骨内から発生する。3. 骨外の軟組織または骨膜から発生した腫瘍が二次的または骨膜を貫通し骨内へ進入する、の三つの発生機序が考えられている^{11～13)}。骨内神経鞘腫の発生頻度としては、1. また3が多いが¹³⁾、下顎骨では下歯槽神経以外から発生した報告はまれである^{10,14,15)}。本症例では、腫瘍は左側下顎第二小臼歯歯根から頬側骨膜間に存在しており、左側下顎第二小臼歯の根尖は骨に含まれ腫瘍との連続性を認めなかった。さらに、下顎管やオトガイ神経とも離れており、腫瘍摘出後も下唇やオトガイを含め下歯槽神経の支配領域に知覚異常を認めなかった。このことから、歯根膜を支配する下歯槽

神経歯根膜枝、もしくは骨膜を支配するオトガイ神経または頬神経の終末枝から発生した腫瘍が二次的に骨膜を貫通し骨内へ進入した可能性が考えられた。

被膜を欠如した神経原性腫瘍では、神経線維腫やmalignant peripheral nerve sheath tumorとの鑑別を要するため、細胞密度や柵状配列の有無、さらには細胞異型および核分裂像に関しても検討する必要がある^{16,17)}。顎口腔領域に発症した神経鞘腫での被膜の有無に関する報告は少ないが、Williamら¹⁸⁾は12例全例とも真の被膜を認めたと報告しており、石井ら¹⁹⁾は29例中不十分な摘出術となった1例を除く28例全例とも被膜が存在していたと報告している。一方で、Buricら²⁰⁾は下顎大臼歯の歯周嚢胞を疑い摘出した根と連続性を認める神経鞘腫において被膜が一部欠如していたと報告しており、本症例も歯根と連続していた部分のみ被膜が欠如していた。さらに、Murphyら¹⁾は下顎犬歯・小臼歯間に存在した神経鞘腫に関して被膜を完全に欠如していたと報告している。Villanuevaら²¹⁾は、上顎中切歯および側切歯の根尖部に存在した神経鞘腫に関して、被膜の欠如を報告している。被膜を欠如した神経鞘腫は、本症例を含めて4例しか報告を渉猟できなかったため今後も検討を要するが、腫瘍細胞が直接歯根のセメント質と接触している面には線維性被膜を形成できない可能性が考えられた。そのため、根と連続性を認める顎骨内神経鞘腫では被膜を欠如する可能性も考慮し、手術計画を立案する必要があると考えられた。

謝辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理組織学的診断に関して御教示を賜りました昭和大学歯学部口腔病理学講座 美島健二先生に深謝致します。

引用文献

- 1) Murphy J and Giunta JL : Atypical central neurilemmoma of the mandible. *Oral Surg Med Oral Pathol* 59: 275-278, 1984.
- 2) 小柳新策, 水谷俊雄: 神経鞘細胞の腫瘍. 臨床神経病理学. 第1版, 西村書店, 東京, 1993, 123-125頁.
- 3) 佐藤良暢, 浜 広信, 他: 頸部 Neurinoma の2症例. *耳鼻* 39: 59-63, 1967.
- 4) 北村 武: 頭頸部腫瘍. 第1版, 医学書院, 東京, 1971, 349-350頁.
- 5) Gallo WJ, Moss M, et al : Neurilemmoma: Review of the literature and report of five cases. *J Oral Surg* 35: 235-236, 1977.
- 6) 亀谷明秀, 中谷善幸, 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.
- 7) 黒川英雄, 津留昭二, 他: 神経鞘腫瘍の5例. *日口外誌* 36: 1764-1775, 1990.
- 8) Fawcett KJ and Dahlin DC : Neurilemmoma of bone. *Am J Clin Path* 47: 759-766, 1967.

- 9) Musgrove BT and Moody GH : Central neurilemmoma of the mandible. *Br Dent J* 169: 206-207, 1990.
- 10) 村山大悟, 永井宏和, 他 : 高齢者の下顎に発生した顎骨中心性神経鞘腫の1例. *口科誌* 54: 368-372, 2005.
- 11) Samter TG, Vellios F, et al : Neurilemmoma of bone. Report of 3 cases with a review of the literature. *Radiology* 75: 215-222, 1960.
- 12) Gordon EJ: Solitary intraosseous neurilemmoma of the tibia: review of intraosseous neurilemmoma and neurofibroma. *Clin Orthop Relat Res* 117: 271-282, 1976.
- 13) Park Y, Kim YW et al : Neurilemmoma of the mandible. *Skeletal Radiol* 28: 536-539, 1999.
- 14) 江口友美, 武田宗弘, 他 : 下歯槽神経に近接し神経症状がなく経過した下顎骨内神経鞘腫の1例. *日口外誌* 49: 397-400, 2003.
- 15) Chi AC, Carey J et al : Intraosseous schwannoma of the mandible: a case report and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 96: 54-65, 2003.
- 16) Ellis GL, Abrams AM et al : Intraosseous benign neural sheath neoplasms of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 44: 731-743, 1977.
- 17) Weiss SW and Goldblum JR : Malignant tumors of the peripheral nerves: Enzinger & Weiss's Soft Tissue Tumors. 5th Ed, Mosby Elsevier, Missouri, 2007, p903-44.
- 18) William HK, Cannell H et al : Neurilemmoma of the head and neck. *Br J Oral Maxillofac Surg* 35: 235-236, 1977.
- 19) 石井純一, 神谷貴充, 他 : 口腔顎顔面領域の神経鞘腫. *日口外誌* 47: 89-92, 2001.
- 20) Buric N, Jovanovic G et al : Mandible schwannoma (neurilemmoma) presenting as periapical lesion. *Dentomaxillofac Radiol* 38: 178-181, 2009.
- 21) Villanueva J, Gigoux C et al : Central neurilemmoma of maxilla. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 79: 41-3, 1995.