上顎骨に発生した神経鞘腫の1症例

林 洋 紀・角田左武郎・桜田 重 世
原田光久・吉村 節・倉地 洋 一
木村義孝・南雲正男・榎本昭二

A case of neurinoma of the maxilla

Yoki HAYASHI・Saburo KAKUTA・Shigeyo SAKURADA
Mitsuhsa HARADA・Setsu YOSHIMURA・Yoichi KURACHI
Yoshitaka KIMURA・Masao NAGUMO・Shoji ENOMOTO

緒 言

神経鞘腫は Schwann 細胞に由来する腫瘍であるといわれているが、口腔領域における報告は比較的少なく、特に顎骨に発生したものはきわめて少ない。また発現年齢は青壮年期に多く、10歳未満の小児に発生した報告例はきわめてまれである。

われわれは今回、7歳男児の上顎骨に発生した神経鞘腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：[REDACTED] 7歳 男性。

初 診：昭和52年5月[REDACTED]日。

主 訴：C14 根尖部の腫脹。

家族歴、既往歴：ともに特記すべきことはない。

現病歴：昭和52年5月[REDACTED]日、B4 根尖部に無痛性の腫脹に気づき、同月9日某小児科を受診し、抗生物質の投与を受けたが効果はみられなかった。同月20日に本院耳鼻科を受診し当科に紹介された。

現 症

全身所見：体格は中等度、栄養は良好であり全身的に異常は認められなかった。

局所所見：顔貌は右上口唇部より鼻翼部にかけてびまん性の腫脹が認められ、ほかには特に異常所見はみられなかった(写真1)。

口腔内所見：初診時には乳歯はすべて残存し、C14

写真1 顔貌所見

根尖相当部にびまん性の腫脹がみられた。被覆粘膜は正常で、発赤、自発痛、圧痛はなく、硬さは、歯肉頬移行部では弾性軟、歯頸部では骨様硬で波動は触れなかった。右鼻腔底は健側に比べ、わずかに膨隆を示していた(写真2)。

X線所見：B4 根尖部にクルミ大の単胞性の境界明瞭なX線透過像が認められ、B4 歯根の吸収がみられた。21は未萌出で透過部遠心に圧排されていた(写真3, 4)。

臨床検査所見：特記すべき異常は認められない。

臨床診断：ろ胞性歯嚢胞の疑い。

処置および経過：上記診断のもとに、5月[REDACTED]日開窓をかねて試験切除を行った結果、嚢胞形成はみられず、病理組織診により神経鞘腫との診断を得たので、8月[REDACTED]日

昭和大学歯学部第2口腔外科学教室(主任：榎本昭二教授)

The Second Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Showa University (Chief: Prof. Shoji Enomoto)

受付日：昭和53年11月13日

写真 2 口腔内所見

写真 4 初診時X線写真

写真 3 初診時X線写真

写真 5 摘出物所見

写真 6 摘出物所見 剖面

GOF 全身麻酔下に腫瘍摘出術を行った。手術所見は、B1 根尖部の 歯槽骨が一部消失し、また鼻腔側の一部にも骨の吸収がみられ、その部分から鼻腔底へも腫瘍の突出がみられた。腫瘍は一層の被膜につつまれ、骨および粘膜との癒着はなく一塊として摘出できた。術後の経過は良好で1年を経過した現在再発はみられていない。

摘出物所見：腫瘍は $3 \times 2.5 \times 2$ cm の大きさで、表面は光沢がありやや凹凸不整で黄白色を示し、硬さは弾性軟であった(写真5)。剖面は充実性で淡黄白色を示し、一部に出血巣が認められた(写真6)。

病理組織学的所見：腫瘍細胞は、紡錓形ないし楕円形の大小不同の核を有し、長紡錓状の細胞が密に束状をなして増殖しており、一部では渦巻状を呈していた。また本腫瘍に特有な核の柵状配列が認められた(写真7, 8)。

電子顕微鏡所見：腫瘍組織の一部をグルタール、オス

ミウム酸で二重固定し、通法に従いエポン樹脂包埋後、薄切した。ウラン・鉛重染色を行い、日立12A型電子顕微鏡にて鏡検した。腫瘍細胞は複雑な分枝と拡がりを出す多数の突起を有し、その形質膜は種々の大きさの細胞内陥入を示していた。核は細胞質と比較して大きく、大きさ形とも不規則であり、細胞内小器官の発達は中等度で、ミトコンドリア、粗面小胞体、遊離リボソームは細胞質内に散在していた。また、腫瘍細胞と間質との間に

写真 7 病理組織所見 (H.E. 染色 ×100)

細長い細胞が密に束状をなして増殖しており一部では渦巻状を呈している。

写真 8 病理組織所見 (H.E. 染色 ×200)

紡錘形ないし楕円形の大小不整な核が認められ、本腫瘍特有な核の柵状配列を示している。

基底膜様構造も認められた (写真 9, 10)。

考 察

神経系腫瘍は、1863年 Virchow がそれまで一括して Neurom として扱われていたものを、Neurom と falsches Neurom とに分類し、その後 von Recklinghausen が1882年に皮膚の多発性線維腫は内外神経鞘結合組織の腫瘍性増殖によるものであるとし、これを Neurofibrom と命名した。1910年 Verocay は Schwann 氏鞘は神経外胚葉由来であるという説をとりいれ、Schwann 細胞の腫瘍性増殖による腫瘍を Neurinom と命名し、外胚葉起源説を主張した^{1,2)}。それ以来、本腫瘍の組織起源がいろいろと論じられ、それに伴って臨床的名称も多様化した。一般には Neurinoma, Neurilemmoma, Schwannoma などと呼ばれ現在にいたっている^{3,4)}。

神経鞘腫は全身どこにでも発生しうるが、聴覚神経、脊髄神経背側根に多く発生するといわれ、また知覚神経に発生しやすいといわれている⁵⁾。顎口腔領域では比較的まれなものとされ、梶山⁴⁾の文献的考察によれば、顎口腔領域での発現頻度は Bruce 1.5%, Kragh 4.6%, 百井 4.3% と著しく低く、顎口腔領域諸疾患のなかで比較しても Pietrantonì 0.02%, Rossi 0.02% と非常に低い頻度であると述べている。本邦では塩田⁶⁾が422例の被検臨床病理材料中に1例も認めず、小野⁷⁾は腫瘍・嚢胞疾患224例中に1例、生田⁸⁾は昭和8年より34年までに4例、岸村⁹⁾は1933年から1977年までの44年間に17例、梶山⁴⁾は1966年から1974年までの19年間に入院処置をした諸疾患2,241例中1例と報告している。

発現部位としては、舌、口蓋、顎下部、口底部、口唇の順に多いといわれ⁴⁾、顎骨内に発現するのはまれである。本邦での報告は、著者らの渉猟した範囲では、下顎

骨例は、小野¹⁰⁾、中条¹¹⁾、生田⁸⁾、Shimura¹²⁾、木下¹³⁾らの計5例、上顎骨例は、酒井¹⁴⁾、八木¹⁵⁾、岡野¹⁶⁾、安里¹⁷⁾ら計4例であり顎骨内に発生したものはきわめて少ない。また Eversole¹⁸⁾による文献的考察では、1937年から1968年までに顎骨に発生したものは18例あり、うち17例が下顎で上顎に発生したのは1例のみである。梶山⁴⁾の文献的考察では、1934年から1974年までに自験例を含め96例が報告されており、性別は男43例、女46例で、性差はなく、年齢的には6歳から76歳と広い範囲にわたっており、平均32.9歳であったという。Willis¹⁹⁾によれば、Stout らは50例の症例で乳児から65歳、Nielsen の130例では18歳から68歳にわたっており30歳代に最も多く、Willis の症例では22例を検索した結果17歳から65歳にわたり、13例が20, 30代であり、平均37歳であったと述べている。しかし、10歳未満の小児に発現したものは、著者らの渉猟した本邦における報告では百井¹⁾の115例中2例、および滝川²⁰⁾の1例が報告されているのみできわめてまれである。

神経鞘腫は、特徴的な臨床所見は特にみられず、無痛性の腫脹を主訴とすることが多く⁴⁾、本例も同様であった。顎骨に発生した症例では、X線所見で単胞性あるいは多胞性の境界明瞭な嚢胞様透過像を示すといわれ^{10,11,13,18)}、本症例でも単胞性の嚢胞様透過像がみられた。

組織学的には、細胞の束状あるいは網状の増殖および核の柵状あるいは観兵式様の配列を特徴としており²¹⁾、Antoni は組織型を束状型と呼ばれるA型および網状型と呼ばれるB型に分類し、百井は束状型をびまん型と限局型に分け、網状型は束状型の移行、変性像であるとして独立型とは認めず、それとは全く異なった網状構造をもつものを網状型として、それぞれ第Ⅰ型、第Ⅱ型、第Ⅲ型と分類している¹⁾。Willis は Antoni の分類にさらに類上皮型を加え3型に分類している¹⁹⁾。しかし、諸家

写真 9 電子顕微鏡所見 ×7,500

核は細胞質と比較して大きく、細胞質内小器官の発達は中等度で、ミトコンドリア、粗面小胞体、遊離リボソームが認められる。

写真 10 電子顕微鏡所見 ×9,000

腫瘍細胞は複雑な分岐と拡がりを出す多数の突起を有し、その形質膜は種々の大きさの細胞内陥入を示している。

の報告からすると³⁻⁵⁾, Antoni の分類が広く用いられているようで、本症例は Antoni の A型に属するものと思われる。

電子顕微鏡による検索では、太田²²⁾、石井²³⁾、木下¹³⁾らの報告によると、腫瘍細胞は基底膜につつまれており、複雑な分岐と広がり示す細胞突起を有し、細胞内小器官の発達は中等度で、核周辺に散在していることが特徴とされており、本症例も前記のようにこれと一致する所見がみられた。また石井ら²³⁾は、腫瘍細胞は単極性または多極性に偽足様の細胞突起を有し、しばしばそこに形質膜の陥入が存在するが、この陥入は Schwann 細胞が本来有する軸索の取り込み能力に基づくもので、腫瘍組織内に軸索が存在しないために単に基底膜および少量の結合組織成分を取り込むように陥入を形成するに至るのであろうと推論している。また基底膜構造を伴うのは末梢神経においては Schwann 細胞のみであり、本来基底膜を有する組織ならば、腫瘍化した場合においても基底膜構造を失わないといわれている。このようなことから、本症例が Schwann 細胞より増殖した神経鞘腫であると推測される。

本腫瘍は全般的に無痛性に発生し、きわめて緩慢に発育し転移や悪性の経過をとることは非常にまれであるとされているが、なかには悪性経過をとった症例も報告されている^{19,24)}。武川⁵⁾は、本腫瘍にもいわゆる異型の核が認められることがあるが、通常は良性の経過をとるということを強調しており、切除後再発の起こらない神経鞘腫でも、よく観察すると多少とも異型の核が認められると述べている。そして悪性の神経鞘腫は von Recklinghausen の神経線維腫症の一部として時にみられるだけと考えてよいと報告している。また Harkin も同様に考えており、良性の神経鞘腫から悪性化するものは、もしあったとしてもきわめてまれなものであると述べている。

本症の治療は摘出術が適当とされており、放射線治療は不適當であるといわれている^{4,25-27)}。

結 語

われわれは、7歳男性の上顎に発生した神経鞘腫の1例を経験したので、その概要を報告し、あわせて若干の文献的考察を加えた。

本論文の要旨は第32回口腔学会総会（昭和53年5月19日、於横浜）において発表した。

引 用 文 献

1) 百井一郎：神経鞘腫の病理学的研究。新瀉医誌 69: 737 1955.

- 2) Verocay, J.: Zur Kenntnis der Neurofibrome. Ziegler Beiträge zur path Anat 48: 1 1910.
- 3) Harkin, J.C. and Reed, R.J.: Tumors of the peripheral nervous system. ed 1, Armed Forces Institute of pathology, Washington, 1968, p 29.
- 4) 梶山 稔, 他：舌神経鞘腫の1例。日口外誌 21: 328 1975.
- 5) 武川昭男：神経線維腫・神経鞘腫。耳喉 49: 777 1977.
- 6) 塩田研次, 他：わが教室過去4年間における被検臨床病理材料422例について。口科誌 6: 437 1957.
- 7) 小野史郎：口腔領域の腫瘍および嚢胞に関する統計的組織学的観察。口外誌 5: 38 1959.
- 8) 生田信孝, 他：顎下部に発生した神経鞘腫 Schwannoma の1例。口外誌 6: 189 1960.
- 9) 岸村真澄, 他：頬部に発生した神経鞘腫の1例。口病誌 44: 471 1977.
- 10) 小野史郎：下顎骨に発生した神経鞘腫の1例。口科誌 8: 117 1959.
- 11) 中条信義, 他：下顎骨内に発生したNeurinoma の1例。口科誌 20: 273 1971.
- 12) Shimura, K., Allen, E.C., Kinoshita, Y. and Takacs, T.: Central neurilemmoma of the mandible. J Oral Surg 31: 363 1973.
- 13) 木下鞆彦, 他：広汎な石灰化を伴った下顎骨中心性神経鞘腫の1例。日口外誌 22: 488 1976.
- 14) 酒井俊一, 他：上顎神経鞘腫例。日耳鼻 65: 236 1962.
- 15) 八木研三, 他：上顎 Neurinom 症例。日耳鼻 62: 2531 1959.
- 16) 岡野光雄, 他：上顎骨に発生した神経鞘腫の1例。口科誌 14: 164 1965.
- 17) 安里幸子, 他：上顎骨に生じた神経鞘腫の1症例。日口外誌 22: 967 1976.
- 18) Eversole, L.R.: Central benign and malignant neural neoplasms of the jaw: a review. J Oral Surg 27: 716 1969.
- 19) Willis, R.A.: Pathology of Tumors. ed 6, Butterworths, London, 1960, p 842.
- 20) 滝川富雄, 他：小児の口蓋に生じた神経鞘腫の一例。日大歯学 44: 9 1970.
- 21) 石川梧朗, 秋吉正豊：口腔病理学 II. 永末書店, 京都, 1001頁.
- 22) 太田邦夫：末梢神経の腫瘍の電子顕微鏡的研究。神経進歩 8: 48 1964.
- 23) 石井英雄, 川端五十鈴：神経鞘腫 (Neurilemmoma) の電子顕微鏡像について。耳鼻臨床 61: 231 1968.
- 24) Thoma, K.H.: Oral Surgery II. ed 5, Mosby Co, St Louis, 1969, p 773.
- 25) Gallo, W.J., Moss, M., Shapiro, D.N. and Gaul, J.V.: Neurilemmoma: review of the literature and report of five cases. J Oral

- Surg 35: 235 1977.
- 26) Hatzios, J. Ch. and Asprides, H.: Neurilemmoma (Schwannoma) of the oral cavity. OS OM OP 24: 510 1967.
- 27) Fawcett, K.J. and Dahlin, D.C.: Neurilemmoma of bone. Am J Clin Path 47: 759 1967.