側頭下窩に発生した神経鞘腫の1例

赤澤 登・小林総一郎・佐野栄作・藤盛真澄
梅木邦彦・寺延 治・中西孝一・島田桂吉

A case of neurilemmoma in the infratemporal fossa

Noboru AKAZAWA・Soichiro KOBAYASHI・Eisaku SANO
Masumi FUJIMORI・Kunihiko UMEKI・Osamu TERANOBU
Koichi NAKANISHI・Keikichi SHIMADA

Abstract: We have reported a case of 65 year-old woman in which a large neurilemmoma occurred in the infratemporal fossa and presented clinically as a swelling in the cheek. It contained a cystic degeneration cavity and inner fluid.

The tumor was removed en block by intraoral surgical approach. Histopathological findings were neurilemmoma (Antoni A and B type). Biochemical analysis of the inner fluid revealed declination of protein involvement compared to serum.

Key words: Infratemporal fossa, neurilemmoma, cystic degeneration

緒 言

神経鞘腫 (neurilemmoma, schwannoma) は, Schwann細胞から由来する腫瘍で1910年, Verocay¹⁾により独立した疾患として命名され, 1920年にAntoni²⁾により組織型が分類されている。以来多くの報告がみられるが, 脳神経領域では聴神経腫瘍や小脳橋腫瘍として多く発生し³⁾, 末梢神経領域では身体各部にみられる。

顎口腔領域では比較的多くみられており, 特に今回のような側頭下窩に生じた報告は, きわめて少ない^{4~13)}。われわれは, 側頭下窩に嚢胞形成を呈した本腫瘍の1例を経験したので, その概要を報告する。

症 例

患 者: 65歳 女性。
初 診: 昭和59年6月■日。
主 訴: 右頬部腫脹。
家族歴: 特記事項なし。

神戸大学医学部口腔外科学教室
(主任: 島田桂吉教授)
Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Kobe University, School of Medicine (Chief:
Prof. Keikichi Shimada)
受付日: 昭和61年9月16日

写真 1 初診時顔貌

既往歴: 約2年前より上室性期外収縮にて, 抗不整脈剤の投与をうけている。

現病歴: 昭和59年6月中旬, 齲歯治療にて受診中の某歯科医に右頬部および頬粘膜部の腫脹を指摘され, 同医よりの紹介にて6月■日当科を受診する。

現 症

全身所見: 体格, 栄養ともに中等度であり, 心電図に

写真2 初診時口腔内

写真3 ウォーターズX線像
右側上顎洞外側壁線の消失を認める。

写真4 パノラマX線像
右側歯槽突起部のびまん性消失，上顎洞の不明瞭化を認める。

て上室性期外収縮を認めるも，その他の異常所見は認めなかった。

局所所見：顔貌は右頬部に鶏卵大のびまん性腫脹を呈し非対称性であった。同部は軽度の緊張を伴うも圧痛，

写真5-a CT像

OM-line 下方 40 mm：右上顎歯槽突起の内側への吸収像を認める。

写真5-b OM-line 下方 25 mm：側頭下窩を中心に球状の腫瘍陰影を認め，右上顎洞の圧迫性の縮小を認める。

写真5-c OM-line 下方 5 mm：蝶形骨洞も一部不明瞭化している。

自発痛および皮膚知覚異常などはみられず，右顎下リンパ節に小指頭大1個を触知したが可動性で圧痛はなく，眼症状，鼻症状も認められなかった（写真1）。

口腔内所見は，7-5|欠歯にて同部の歯槽堤は内側へ

表 1 腫瘍内容液の生化学的分析

TP	3.3 ↓ (6.0)	mg/dl	BUN	12 (12)	mg/dl
A/G	1.54 (1.40)		Na	141 (142)	mEq/l
AIP	38 ↓ (90)	IU/l	K	3.3 (3.5)	mEq/l
LDH	145 ↓ (192)	IU/l	Cl	114 (111)	mEq/l
Chol	80 ↓ (164)	mg/dl	Ca	6.9 (8.6)	mg/dl
TG	22 ↓ (116)	mg/dl	P	2.6 (2.8)	mg/dl

() : 血清

写真 6-a 摘出物

写真 6-b 摘出物 (内面)
嚢胞腔を形成している。

圧迫性にえぐりとられたような吸収を認め、同部から頬粘膜にかけ、弾性軟で波動を伴う腫脹がみられたが表面は正常粘膜を呈した (写真 2)。また唾液分泌に異常はみられなかった。

X線所見: ウォーターズX線所見では、右側上顎骨外側壁線の消失、上顎洞の内方への圧迫を認めた (写真 3)。パノラマX線所見では、右側歯槽突起部のびまん性消失、上顎洞の不明瞭化を認めた (写真 4)。CT 所見では、OM-line 下方 40 mm にて上顎歯槽突起の内側への吸収像を認め (写真 5-a)、OM-line 下方 25 mm にて側頭下窩を中心に球状の腫瘍陰影を認め、右側上顎

写真 7 病理組織所見

腫瘍は結合組織で被包化され、出血巣も認められる (H-E 染色, ×40)。

写真 8 病理組織像

Antoni A 型の部分を示す (H-E 染色, ×100)。

写真 9 病理組織像

Antoni B 型の部分を示す (H-E 染色, ×100)。

洞の圧迫性の縮小化がみられた (写真 5-b)。また、OM-line 下方 5 mm にて蝶形骨洞の一部不明瞭化が認められた (写真 5-c)。

処置および経過：腫瘍状陰影の境界が明瞭であり、圧迫性に増殖していることより、側頭下窩を中心とする良性腫瘍の臨床診断にて7月■日、口腔内より試験穿刺および生検を施行した。試験穿刺にて約15 mlの黄色透明な内容液を吸引した。

内容液はただちに遠沈し、上清を生化学的分析し患者の血清値と比較したところ、総蛋白、アルカリフォスファターゼ、LDH、コレステロール、TGにおいて、患者血清よりも低値を呈した(表1)。

生検は7-5欠損部の顴頬移行部に切開を加え、粘膜下に被包化された腫瘍実質を採取し、神経鞘腫の診断を得た。患者はただちに入院させ、7月■日全麻下にて腫瘍摘出術を施行した。

手術所見：生検の際の切開線を前方後方に延長し、粘膜下を鈍的に剥離していくと、腫瘍は被包化されており、腫瘍と口腔粘膜および周囲組織との剥離は容易で、上顎骨外側部ついで後外側部より順次剥離を進めた。頬粘膜側では、頬脂肪体と腫瘍との剥離は困難であり、頬脂肪体を摘出しながら剥離を進めた。上顎骨は外側より腫瘍の圧迫による骨吸収を認めたが、骨膜を有し、骨内への腫瘍浸潤を思わせる粗造感のみられなかった。

腫瘍は一塊として摘出でき、表面は平滑で弾性軟、黄色の被膜を有し、嚢胞形成を認めた(写真6-a)。内面は凹凸不整で黄白色の腫瘍実質を認めた(写真6-b)。摘出時、特に出血に悩まされることもなく、ドレーンを挿入手術を終了した。また特定の神経束と腫瘍のゆ着などは認められなかった。

術後2年を経た現在、経過は良好で再発などは認めていない。

病理組織学的所見：摘出物を通法に従いH-E染色したところ、腫瘍は結合組織で被包化され、ところどころ出血巣を認め(写真7)、紡錘形ないし楕円形の核が規則的に束状、渦巻状に配列しているAntoni A型の部分(写真8)と、粗な細胞密度で粘液腫様のAntoni B型の部分(写真9)とが混在していたが、主体はAntoni A型であった。

考 察

神経鞘腫は1910年Verocay¹⁾が、外胚葉由来のSchwann細胞の増殖によるものとして、Neurinomaと命名して以来、neurinoma, schwannomaとも称されている。また発生源については、Verocay¹⁾、Stout¹⁴⁾のSchwann細胞由来説、Mallony¹⁵⁾の神経鞘結合繊細胞由来説、Raimondi¹⁶⁾のperineurial cell由来説などがあり議論の多いところであるが、最近の知見¹⁷⁻²¹⁾によれば、Schwann細胞を起源とする説が最も一般的である。

神経鞘腫の発生頻度は遠城寺²²⁾によれば、1963~1972年の良性軟部組織腫瘍8,086例中825例で、血管腫、脂

肪腫に次いで多く、頭頸部領域は242例(29%)と比較的多く、その大部分は頸部である。

顎口腔領域の本疾患の発生頻度は少なく、中村²¹⁾は、40年間の文献を検索し186例の報告をみるのみで、舌が82例(44%)と最も多く、頬部、頬骨部、側頭下窩16例、下顎骨14例、口底13例、顎下部12例、口蓋12例の順としている。舌に多いのは他の報告でも一致しており、Wright²³⁾は52.0%、梶山²⁴⁾は52.0%、Hatziotis²⁵⁾は55.1%、Gallo²⁶⁾は45.2%とほぼ全体の半数を占めている。

本症例のような側頭下窩に発生をみた報告は比較的少なく、われわれの渉猟しえたのは内外あわせて10例⁴⁻¹³⁾の報告があるのみである。なかでも村上¹¹⁾の報告した1例は本症例と部位がよく似ており、また嚢胞形成をみたことでも一致している。

神経鞘腫の嚢胞化はThoma²⁷⁾も述べており、Stout¹⁴⁾、Ehrlich²⁸⁾も報告している。しかるに内容液の生化学的性状については報告がなく本症例のみである。その意義については詳細は不明であるものの、タンパクの含量の低下は、変性の結果であるとする角化嚢胞およびエナメル上皮腫の知見²⁹⁾から、大きな神経鞘腫の内部に変性が生じ嚢胞化したと推測することもできる。

組織型については、Antoniの分類²⁾が一般的であり、束状型(Antoni A型)と網状型(Antoni B型)とに大別されるが、両者が混在することも少なくない。本症例も主体は束状型であったが、一部に網状型も混在していた。嚢胞形成と組織型との関連は特にみられず、嚢胞内腔面に網状型がみられ、網状型は束状型の変性の結果であるということも特にみられなかった。

側頭下窩部の腫瘍については、解剖学的にも臨床的にも特異な部位であり報告は少ない。Conley³⁰⁾は側頭下窩部の腫瘍について(1)同部に原発した腫瘍、(2)隣接領域から直接侵入伸展した腫瘍、(3)遠隔部に発生した腫瘍の転移してきたものの3つに大別しており、田頭¹³⁾は文献的考察を行い、側頭下窩に原発したもの30例、近接部より進展したもの69例、遠隔転移したもの4例と報告している。またConley³⁰⁾は側頭下窩に発生する腫瘍として、

1) 側頭下窩原発腫瘍：(a)血管腫、リンパ管腫、神経線維腫、神経鞘腫(b)悪性腫瘍、リンパ肉腫、悪性神経鞘腫、線維肉腫、胎児性横紋筋肉腫

2) 近接部より進展してくるもの：血管腫、神経線維腫、骨腫、髄膜腫

3) 遠隔部位よりの転移をあげている。

いずれにせよ、この部位はきわめて特異であり、かなりの大きさに達しないと症状を呈さないことが多く、また石川³¹⁾は増大侵入機序の一端が側頭筋と外側翼突筋の筋牽引力にあるとしている。本症例においても、右頬部腫脹を主訴として来院しているものの、他人よりの指摘

により本人が自覚するようになり、特にその他の自覚症状を認めていない。

神経鞘腫の治療法としては、外科的切除が選択されるが、この部位の外科的アプローチについては、Conley³⁰⁾, Shapshay³²⁾, Johnson³³⁾, Shaheen³⁴⁾ が種々の報告をしているが、口内法と外切開法に分けることができる。幸いにして本症例は口腔内より一塊として腫瘍を摘出することができた。

神経鞘腫は一般に被膜内摘出で十分とする考えもあるが、被膜の残存により再発も考えられ、またまれに悪性化の報告もあるので、今後さらに経過を観察する必要があると思われる。

結 語

65歳女性の側頭下窩に発生し、嚢胞状を呈した神経鞘腫の1例を経験し、口腔内よりのアプローチにて腫瘍摘出を行い良好な結果が得られたのでその概要について文献的考察を加え報告した。また嚢胞内容液の生化学的性状についても検討した。

本論文の内容の要旨は、第30回日本口腔外科学会総会(昭和60年9月24日・25日、於東京)にて発表した。

引 用 文 献

- Verocay, J.: Zur Kenntnis der Neurofibrome. Beitr Pathol Anat Allgen Pathol 48: 1-69 1910.
- Antoni, N.R.E.: Über Rückenmarkstumoren und Neurofibroma. J.F. Bergmann, München, 1920. 9) より引用
- 浜口栄祐編: 最新外科総論. 第2版, 医学書院, 東京, 1971, 267-268頁.
- 伊集院淳一, 沢田乃輔, 他: 側頭下窩に生じた神経鞘腫の1例(抄). 口外誌 9: 293 1963.
- 林 進武, 浅野泰彦, 他: 頬部に発生したNeurinomaの1例. 口科誌 16: 83-85 1967.
- 岡野光雄, 舩松克彦, 他: 頬骨弓下に発生した神経鞘腫の1例(抄). 口科誌 19: 418 1970.
- 熊谷星郎, 長内 剛, 他: 頬骨弓深部に生じたNeurilemmomaの例(抄). 口外誌 15: 267 1969.
- Couch, C.D., Jr.: Neurilemmoma of the head and neck. J Oral Surg 12: 19-28 1954.
- Whitlock, R.I.H., McCrea, R.S., et al.: Neurilemmoma in the infratemporal fossa. Oral Surg 24: 291-300 1967.
- Arena, S. and Hial, E.Y.: Neurilemmomas of the Infratemporal Space. Arch Otolaryngol 102: 180-184 1976.
- 村上賢一郎, 金海京治, 他: Retromaxillary space に発現した巨大な神経鞘腫の1例. 口外誌 27: 598-603 1981.
- 古沢清文, 浦出雅裕, 他: 下顎枝内面に著明な骨吸収を示した神経鞘腫の1例. 口科誌 35: 925-929 1986.
- 田頭宣治, 川口和幸, 他: 側頭下窩神経鞘腫の治療経験, 耳喉 58: 411-415 1986.
- Stout, A.P.: The peripheral manifestations of the specific nerve sheath tumor (neurilemmoma). Am J Cancer 24: 751-796 1935.
- Mallory, F.B.: The type cell of the so-called dural endothelioma. J Med Res 4: 349-367 1930.
- Raimondi, A.J. and Beckman, F.: Perineurial fibroblastomas — Their fine structure and biology. Acta Neuropathol 8: 1-23 1967.
- 松田 登, 四分一 泉, 他: 神経鞘腫の症例とその電顕所見について. 口科誌 25: 445-450 1976.
- 下里常弘, 奥井 寛, 他: 神経鞘腫の電子顕微鏡ならびに組織培養による観察所見について. 口科誌 25: 396-402 1976.
- Murray, M.R., Stout, A.P., et al.: Schwann cell versus fibroblast as the origin of the specific nerve sheath tumor. Am J Pathol 16: 41-60 1940.
- Murray, M.R. and Stout, A.P.: Demonstration of the formation of reticulin by Schwannian tumor cells *in vitro*. Am J Pathol 18: 585-593 1942.
- 中村 篤, 斎藤健一, 他: 舌下面に発生した神経鞘腫の1例. 口外誌 31: 2218-2222 1985.
- 遠城寺宗知, 岩崎 宏, 他: わが国における良性軟部組織腫瘍—8,086例の統計的観察—, 癌の臨床 20: 594-609 1974.
- Wright, B.A. and Jackson, D.: Neural tumors of the oral cavity. Oral Surg 49: 509-522 1980.
- 梶山 稔, 鬼塚謙治, 他: 舌神経鞘腫の一例. 口外誌 21: 328-335 1975.
- Hatziotis, J. Ch. and A sprides, H.: Neurilemmoma (schwannoma) of the oral cavity. Oral Surg 24: 510-526 1967.
- Gallo, W.J., Moss, M., et al.: Neurilemmoma: review of the literature and report of five cases. J Oral Surg 35: 235-236 1977.
- Gorlin and Goldman: Thoma's Oral Pathology. ed 6, St Louis, Mosby, 1970, p 875.
- Ehrlich, H.E. and Martin, H.: Schwannoma (Neurilemmomas) in the head and neck. Surg Gynec and Obst 76: 577-583 1943.
- 鈴木 貢: 顎嚢胞—基礎と臨床—, 第1版, 金原出版, 東京, 1984, 11-14頁.
- Conley, J.J.: Tumors of the infratemporal fossa. Arch Otolaryngol 79: 498-504 1964.

- 31) 石川武憲, 野村雅久, 他: 翼突窩, 側頭下窩および側頭窩へ侵入伸展した下顎 kerato cyst の1例—特に伸展機序における筋牽引力について— 日口外誌 27: 1138-1145 1981.
- 32) Shapshay, S.M.: Ocult tumors of the infratemporal fossa. Arch Otolayngol 102: 535-538 1976.
- 33) Johnson, A.T.: Extra-cranial tumors of the infratemporal fossa. J Laryngol Otol 96:1017-1026 1982.
- 34) Shaheen, O.H.: Swellings of the infratemporal fossa. J Laryngol Otol 96: 817-836 1982.