嚢胞状を呈した顎下部神経鞘腫の1例

河原 健司・本間 義郎・大塚 亨・中村 昌幸
田畑 利章・浅野 信雄・葛原 武・木下 毅彦
志村 介三

A case of cystic schwannoma of the submandibular

Kenji KAWAHARA・Yoshio HONMA・Tohru OHTSUKA
Masayuki NAKAMURA・Toshifumi TABATA・Nobuo ASANO
Takeshi KUZUHARA・Yukihiko KINOSHITA・Kaizo SHIMURA

Abstract: 55-year-old man with a cystic schwannoma of the left submandibular region was examined and the case discussed with reference to the literature.

The lesion was treated by *en bloc* excision of the tumor and the submandibular salivary gland. The lesion was histopathologically revealed to be a mixed type of Antoni A and B, showing formation of a large inner cystic cavity with markedly distended blood vessels and hemorrhagic changes around the cavity. The postoperative course was eventless, and no recurrence has been observed up to the present, one year and months after the operation.

Key words: schwannoma (神経鞘腫), submandibular region (顎下部), cystic formation (嚢胞形成)

緒 言

神経鞘腫は外胚葉性の Schwann 細胞に由来する腫瘍で、神経の存在する身体のいずれの部位にも発生しうるが、好発部位は脊髄神経、聴神経および皮膚の末梢神経であり¹⁾、顎、口腔領域での発生は比較的多い。また、

今回、われわれは顎下部に発生し、嚢胞状を呈した神経鞘腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：55歳 男性。

初 診：1987年5月。

主 訴：左顎下部の腫脹。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：高血圧症のため、降圧剤を服用している。

現病歴：昭和62年5月初旬、職場の同僚から左顎下部

神奈川歯科大学口腔外科学教室

(主任：志村介三教授)

Department of Oral Surgery, Kanagawa Dental College (Chief: Prof. Kaizo Shimura)

受付日：平成元年7月24日

の腫脹を指摘されたが、無痛性のため放置していた。しかし、腫脹が消退しないため某歯科を受診し、当科を紹介され来院した。

現 症：全身所見では体格中等度、栄養状態良好で、全身皮膚などにも特に異常は認められなかった。顔貌所見では左顎下部に鶏卵大、弾性硬の境界明瞭な腫瘍を認めた(写真1 A, B)。腫瘍は可動性で、圧痛は認められなかった。また口腔内所見では特に異常は認められず、左右顎下腺管開口部からの唾液流出も正常であった。

X線所見：単純X線写真では顎骨、胸部ともに異常は認められなかった。76%ウログラフィンによる左顎下線造影では、左顎下腺管はやや拡張し、下方に圧排されていたが、漏洩や欠損像などの所見は認められなかった(写真2 A, B)。CT 所見では左顎下部に境界明瞭で内部が比較的透過性のある円形の腫瘍像が認められた(写真3)。

臨床検査所見：血液一般検査、血清生化学検査、尿検査、心電図には異常は認められなかった。

臨床診断：左顎下部腫瘍。

処置および経過：昭和62年7月入院、7月GOF 麻酔下にて、左顎下部より腫瘍摘出術を施行した。腫瘍直上で皮膚切開を加え、鈍的に周囲組織を剥離

写真 1 初診時顔貌所見

すると、顎下腺の上内方に腫瘍が認められた。腫瘍は、周囲の筋組織、結合組織から容易に剝離されたが、顎下腺とは密に接しており、これと一塊として摘出した。出血量は 47 ml であった。術後の経過は良好で、7 月退院し 1 年 11 か月後の現在、再発、ならびに神経症状は認められない。

摘出物所見：腫瘍は 3.0 cm×3.5 cm 大で、薄い被膜に被われた卵円形を呈し、表面は平滑、赤褐色で弾性硬であった。穿刺すると赤褐色漿液性の内容液 3.5 ml が吸引された。また、腫瘍の断面をみると内部に大きな嚢胞腔が認められ、腔内面は軽度の凹凸があり灰白色を呈していた（写真 4）。

病理組織学的所見：腫瘍は線維性の被膜を有し、腫瘍と顎下腺との間には線維性結合組織が介在し、顎下腺組織には導管の拡張がみられるほかは、特に変化は認められない（写真 5）。腫瘍辺縁部は細胞成分に富み、紡錘形ないし楕円形の核を有する細長い細胞が、うねるよう

写真 2 唾液腺造影像

写真 3 頸部 CT 写真

に束状をなして増殖し、また核は柵状あるいは親兵式様配列を呈している（写真 6 A）。腫瘍中心部で嚢胞腔に近い部分では比較的細胞成分に乏しく、多極性の突起を有する細胞が散在し、細胞間は浮腫状あるいは粘液腫状を呈している（写真 6 B）。また、嚢胞腔周囲には、血管の著しい拡張（写真 7 A）や出血性変化（写真 7 B）が認められる。ワンギーソン染色では、腫瘍細胞間の線維は黄色調を呈し、被膜に見られるような膠原線維はほとんど認められない。

写真 4 摘出物所見

A : 摘出物 Tは腫瘍, Sは顎下腺

B : 断面所見

写真 6 病理組織所見 (H-E 染色) (×200)

A : Antoni A型を示す腫瘍辺縁部

B : Antoni B型を示す腫瘍中央部の囊胞腔に近い部分

写真 5 病理組織所見 (H-E 染色) 全体像

PAP 法による S-100 蛋白の免疫組織化学的検索では、腫瘍細胞の大部分は核、細胞質ともに S-100 蛋白、陽性を示している (写真 8)。また、透過電顕所見では、胞体が明るく、基底膜を持ったいわゆる Schwann 細胞様細胞が多数の細長い突起を出し、互いに入り組み、相接しているのが認められる (写真 9)。

以上の所見より、本腫瘍は囊胞変性を伴った神経鞘腫

で、Antoni A型、B型の混在型と診断した。

考 察

1. 臨床的事項について

1910年 Verocay²⁾は、Schwann 細胞の腫瘍性増殖によるものを Neurofibrome と区別して Neurinoma と命名した。以来、その組織起源について、神経外胚葉説³⁻⁶⁾と結合組織細胞説^{7,8)}あるいは両者を取り入れた説⁹⁾などに分かれ論争が重ねられてきたが、現在では電顕的所見などにより、神経外胚葉性の Schwann 細胞を起源とする説が一般に支持され、その名称も Neurinoma, Neurilemmoma, Schwannoma などと呼ばれている¹⁰⁾。

神経鞘腫は有髄神経の分布するいずれの部位にも発生するが、遠城寺¹¹⁾らの本邦における良性軟部組織腫瘍 8,086例の集計によれば、本腫瘍はそのうち825例 (10.2%) で、部位別では頭頸部が 242 例と最も多く、頸部がその大半を占めている。

しかし、顎口腔領域での本腫瘍の発生頻度は低く、Bruce¹²⁾はコロンビア大学で1926年～1944年の神経鞘腫

写真 7 病理組織所見 (H-E 染色) (弱拡大)

A: 血管の著しい拡張を示す部分

B: 出血性変化

写真 8 病理組織所見 (×400)

腫瘍細胞は S-100 蛋白抗体陽性を示す。PAP 法

130例中、2例 (1.5%)、Stout は 50例中7例、百井 (1955)¹³⁾ は 115例中5例 (4.3%) であったと報告している。顎、口腔領域における本腫瘍の発生部位については、Gallo ら¹⁴⁾ は 157例の検索の結果、舌が 71例と最も多く、次いで頬粘膜 21例、下顎骨 18例、口底 14例、口蓋 12例、歯肉、口唇、各 7例、口腔前庭 5例、上顎骨 2例の順であったとしている。本邦では、柳澤ら¹⁵⁾ は 198例の

写真 9 Antoni A部の電子顕微鏡像

文献的検索から、舌が最も多く 70例 (35.4%) ついで下顎骨、口唇が各 17例 (18.6%)、口蓋、口底が各 16例 (8.1%)、顎下部 13例 (6.6%) と報告している。

また、当教室で、過去 18年間に、神経鞘腫と診断されたものは 9例で、その発生部位は舌 3例、下顎骨、歯肉が各 2例、口底、顎下部が各 1例であった。いずれにしても、本腫瘍が顎下部に発生することは少なく、これまでの本邦の報告例をまとめると計 15例であり、その内訳は表 1 のごとくである。

一般に本腫瘍は青年期に多く、性差はあきらかでなく、臨床症状は徐々に発育し、無症状に経過することが多い。顎下部のものは、50歳代に 7例と最も多く平均 48歳で全般に高齢化の傾向を示している。これは解剖学的に発見されにくい場所で、診断されるまで日時を要するためと思われる。また、性差では、男性 6例、女性 9例で、女性に多く発生する傾向であった。

2. 病理組織像について

本腫瘍の組織像については、Antoni³⁾、百井¹³⁾、Wil-lis²⁸⁾、らの分類があるが、一般的には、Antoni³⁾の分類が広く用いられている。すなわち Antoni A 型 (束状型) では、紡錘型ないし楕円形の核を有する細長い細胞が密に束状をなして増殖し、細胞間には平行に走る多数の細線維がみられ、核は特徴的な柵状あるいは親兵式配列を示す。電顕的には、基底膜をもった、胞体の明るい Schwann 細胞様細胞が、細長い突起を出し、互いに鉗合、相接し集族をなしているのが認められる¹⁰⁾。一方 Antoni B 型 (網状型) では、細胞はまばらに配列し、多極性の細胞質突起をもって互いに連絡している。細胞間の細線維は乏しく、走行も不規則であり、しばしば泡沫細胞の出現、粘液様変性、出血、嚢胞形成などを伴うことがある²⁹⁾。当科で経験した 9例では、束状型の Antoni A 型が 4例、これに網状型の Antoni B 型を伴った混在型が本症例を含め 5例であり、そのうち 2例に

表 1 顎下部に発生した神経鞘腫の本邦報告例

報告者	報告年	年齢	性	部位	受診までの期間	自覚症状	初診時臨床診断	大きさ (cm)	組織型
	1965	55	♂	左				超鶏卵大	
	1960	47	♂	右	4 年	腫脹	放線菌症	3.7×5.0×3.0 1.2×2.0×1.0	
	1965	53	♀	左	1 年	腫脹	唾石症	4.0×3.0×3.0 (16.9 g)	
	1965	39	♀	右	3 年	腫脹, 圧痛		5.5×4.5×4.0 (34.9 g)	
	1965	49	♀	左	2 年	腫脹	顎下腺由来の腫瘍	3.3×4.8×2.8 (21.0 g)	
	1969	12	♀	右	3 年	腫脹	慢性唾液腺炎	6.5×3.5×4.0 (40 g)	A 型
	1969	29	♀	右				(30 g)	A B 型
	1973	51	♀		2 年	舌運動麻痺	唾液腺腫瘍		
	1977	50	♂	左	4 年	腫脹		4.5×3.7×3.0	
	1979	24	♀	右	4 年	腫脹	唾液腺混合腫瘍	7.0×6.4×4.8 (110 g)	
	1981	55	♂	右	6 年	腫脹	顎下腺部良性腫瘍	7.0×5.0×5.0 (67 g)	A 型
	1985	76	♀	左	6 か月	腫脹	顎下部腫瘍	4.0×2.8×2.2	悪性神経鞘腫
	1985	73	♀	右	1 か月	腫脹	顎下部良性腫瘍	5.5×1.4×1.3 5.0×1.8×1.2 3.3×2.5×1.8 大の結節状 (23 g)	
	1987	52	♂	右	2 年	腫脹	慢性顎下腺炎, 嚢胞性疾患	4.2×3.0×4.0	
	1989	55	♂	左	2 か月	腫脹	顎下部腫瘍	3.0×3.5	A, B 混在型

* 学会抄録

嚢胞の形成が認められた。また、宮崎ら³⁰⁾も 128 例中 26 例 (20.3%) に嚢胞の形成がみられ特に顎下部のものは、その頻度が高いとしているが本症例のごとく腫瘍全体に嚢胞状を呈するものはまれである^{25, 30~33)}。本腫瘍における嚢胞形成機序については腫瘍内の豊富な毛細血管に、循環障害が起こり腫瘍の栄養供給が不良になった結果とする説^{6, 34)}と、Antoni B 型にみられる小嚢胞がいくつか癒合した結果であるとする説がある³⁵⁾。本症例では、Antoni B 型を示すところには、小嚢胞はほとんど認められず、むしろ嚢胞周囲に毛細血管の著しい拡張や、出血性変化などがみられたことから、Stout⁶⁾, Ehrlich³⁴⁾の主張のごとく、腫瘍内血管に循環障害が生じしだいに腫瘍実質が嚢胞化したと考えられる。

治療は摘出術が最適で、再発や悪性化をきたすことはほとんどない。本症例でも摘出後 1 年 11 か月、再発なく順調な経過をみている。

結 語

今回、われわれは 55 歳男性の嚢胞状を呈した、顎下部神経鞘腫の 1 例を経験したのでその概要を報告し、あわせて文献的考察を加えた。

本論文の要旨は、第 22 回日本口腔外科学会関東地方部会で報告した。

引 用 文 献

- 1) 浜口栄祐編集：最新外科総論。第 2 版，医学書院，東京，1971，267-268 頁。
- 2) Verocay, J.: Zur Kenntnis der "Neurofibrome". Ziegler Beiträge zur path Anat 48: 1-69 1910.
- 3) Antoni, N.S.R.: Über Rückenmarksmoren und Neurofibroma. J.F. Bergmann, München, 1920.

- 4) Masson, P.: Experimental and spontaneous schwannomas (Peripheral Glioma). *Am J Path* 8: 367-416 1932.
- 5) Masson, P.: My conception of cellular nevi. *Cancer* 4: 9-38 1951.
- 6) Stout, A.P.: The peripheral manifestations of the specific nerve sheath tumor (Neurilemmoma). *Am J cancer* 24: 751-796, 1935.
- 7) Mallory, F.B.: The type cell of the so-called dural endothelioma. *J Med Res* 4: 349-367 1920.
- 8) Penfield, W.: The encapsulated tumors of the nervous system. *Surg Gynec Obstet* 45: 178-188 1927.
- 9) Herxheimer, G. and Roth, W.: Zum Studium der Recklinghausen'schen Neurofibromatose. *Beitr z path Anat* 58: 183-193 1914.
- 10) 木下鞠彦, 高江洲 尚, 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: 488-497 1976.
- 11) 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.
- 12) Bruce, K.W. and Rochester, M.: Solitary neurofibroma (Neurilemmoma, Schwannoma) of the oral cavity. *OS OM OP* 7: 1150-1159 1954.
- 13) 百井一郎: 神経鞘腫の病理学的研究. *新潟医誌* 69: 737-757 1955.
- 14) Gallo, W.J., Moss, M., et al.: Neurilemmoma: review of the literature and report of five cases. *J Oral Surg* 35: 235-236 1977.
- 15) 柳澤高道, 石川俊明, 他: 下唇に発生した神経鞘腫の1例. *日口外誌* 34: 56-61 1988.
- 16) 生田信孝, 小幡幸男, 他: 顎下部に発生した神経鞘腫 Schwannoma の1例. *口外誌* 6: 189-191 1960.
- 17) 谷 一郎, 竹下 剛: 頸部並びに顎下腺ノイリノームの症例. *耳喉* 37: 879-881 1965.
- 18) 太田 舜, 青山 亘, 他: 顎下部 Neurinoma の1例. *口科誌* 15: 389-394 1966.
- 19) 川平 淳, 野井倉武憲, 他: 顎下部に発生した神経鞘腫の1例(抄). *日口外誌* 15: 267 1969.
- 20) 高橋 良, 日野原 正, 他: 耳鼻科領域の Neurilemmoma について(耳, 副鼻腔, 咽頭等)(抄). *日耳鼻* 72: 1777 1969.
- 21) 宮川公文, 関谷忠雄: 顎下部にみられた神経鞘腫症例(抄). *日耳鼻* 76: 410 1973.
- 22) 高井克慈, 石原道郎, 他: 顎下腺部に発生した Neurinoma の1例. *日口外誌* 23: 521-524 1977.
- 23) 立松憲親, 小島 良, 他: 右顎下部に発生した神経鞘腫の1例. *口科誌* 28: 296-300 1978.
- 24) 山崎 正, 武田 進, 他: 顎口腔領域に発生した神経鞘腫5例. *日口外誌* 27: 968-976 1981.
- 25) 浜田俊彦, 白川正順, 他: 顎下部に発生した神経鞘腫の1例. *日口外誌* 31: 2457-2461 1985.
- 26) 福田廣志, 小守 昭, 他: 悪性神経鞘腫. *日口外誌* 31: 301-309 1985.
- 27) 佐々木孝道, 百瀬文雄, 他: 顎下部に生じた神経鞘腫の1例(抄). *日口外誌* 33: 2584-2585 1987.
- 28) Willis, R.A.: Neurilemmoma and other tumours of nervesheaths. Willis, R.A.: Pathology of tumours, 4th ed, Butterworths Co, London, 1967, p 842-856.
- 29) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1984, 590-591頁.
- 30) 宮崎宏之, 待田順治, 他: 口底部に発生した神経鞘腫の1例. *日口外誌* 34: 319-322 1988.
- 31) 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. *日口外誌* 27: 598-603 1981.
- 32) 池田直也, 二宮半三, 他: 耳下腺部に発生した巨大な神経鞘腫1例. *歯放* 25: 301-306 1985.
- 33) 赤澤 登, 小林総一郎, 他: 側頭下窩に発生した神経鞘腫の1例. *日口外誌* 33: 408-413 1987.
- 34) Ehrlich, H.E. and Martin, H.: Schwannomas (Neurilemmomas) in the head and neck. *Surg Gynecol Obst* 76: 577-583 1943.
- 35) Lucas, R.B.: Tumours of neural tissue; Pathology of Tumours of the Oral Tissues. 4th ed, C Livingstone, London, 1984, p 213-217.