口蓋に生じた孤立性神経線維腫の1例

楠川 仁 悟・田 中 俊 一・山 鹿 憲
亀 山 忠 光・朱 雀 直 道

A case of solitary neurofibroma of the palate

Jingo KUSUKAWA・Shunichi TANAKA・Ken YAMAGA
Tadamitsu KAMEYAMA・Chokudo SUJAKU

Abstract: Solitary neurofibroma in the oral cavity is rare. We have experienced one case of solitary neurofibroma on the hard palate. The patient was a 25-year old man. He visited our clinic with a chief complaint of mass formation of the right hard palate. We found neither cafe-au-lait spots nor tumors on the skin of his whole body. The tumor was totally excised under local anesthesia. From Histopathological findings it was diagnosed as a neurofibroma.

Key words: neurofibroma (神経線維腫), solitary (孤立性), palate (口蓋)

緒 言

神経線維腫は末梢神経の Schwann 細胞, 神経周膜や神経内膜より生じる良性腫瘍である。本腫瘍は, 身体各部の皮膚または皮下に生じ, 口腔では von Recklinghausen 氏病の部分症状としてみられることが多く, 孤立性に発生することはまれとされている¹⁾。

今回, われわれは, 25歳男性の硬口蓋部に生じた孤立性神経線維腫を経験したので報告する。

症 例

患 者: 25歳 男性。
初 診: 昭和62年5月。 [REDACTED]。
主 訴: 右側硬口蓋粘膜の腫瘍形成。
家族歴: 家族・同胞に特記すべき事項なし。
既往歴: 特記すべき事項なし。
現病歴: 約1年前より 5~3) 相当硬口蓋粘膜に腫瘍形成を認めるが, 疼痛なく大きさに変化しないため放置する。1か月前に歯科治療のため某歯科を受診した際, 同

部の腫瘍を指摘され切開処置を受けるが, 排膿なく腫瘍に変化しないため, 紹介により来科した。

現 症: 体格・栄養状態ともに良好で, 顔面全身皮膚に異常所見は認めなかった。

口腔内所見: 5~3) 相当硬口蓋粘膜に 15×12 mm の, 表面平滑で正常粘膜にて被覆された半球状腫瘍がみられた(写真1)。触診にて粘膜上皮および下在組織とはやや可動性のある弾性軟腫瘍であった。

X線所見: デンタル, 上顎咬合法および顔面前頭断面層撮影法にて, 腫瘍周囲の骨の異常吸収像は認めなかった(写真2)。

臨床診断: 良性腫瘍の疑い。

処置ならびに経過: 局麻下に腫瘍切除術を施行。すなわち, 腫瘍周囲に紡錘形に切開を加え, 周囲より腫瘍を鈍的に剝離し骨膜上で切除した。術後経過は良好で, 術後1年6か月の現在, 再発なく順調に経過している。

摘出物所見: 腫瘍は表面滑沢で黄白色, 弾性軟であった(写真3)。剖面では, 腫瘍は粘膜下に存在し, 境界明瞭な長楕円形で透明感のある黄白色, 充実性腫瘍であった。腫瘍は明らかな被膜なく, 粘膜との剝離は困難であった(写真4)。

病理組織学的所見: 腫瘍は明らかな線維性被膜を認めない(写真5)。腫瘍実質は, H-E 染色にて紡錘形あるいは類円形の核と細長い胞体をもつ細胞と(写真6), Azan 染色にて青染した膠原線維の増殖よりなり, その線維の走向は特徴的で, いわゆる波状配列を示し(写真7), 一部には“花むしろ”状の走向を示す部分がみら

久留米大学医学部口腔外科学教室
(主任: 朱雀直道教授)
Department of Oral Surgery, Kurume University
School of Medicine (Chief: Prof. Chokudo Sujaku)
受付日: 昭和63年11月25日

写真 1 口腔内所見

写真 4 摘出物割面所見

写真 2 咬合X線所見

写真 5 病理組織所見 (H-E, ×20)

写真 6 病理組織所見 (H-E, ×100)

写真 3 摘出物所見

れた. Alcian Blue 染色にて青染した物質を認めた. 免疫組織学的には, S-100 蛋白陽性の細胞が散在性に認められ, Schwann 細胞と考えられた (写真 8).

以上の臨床ならびに病理組織所見より, 口蓋の神経線維腫と診断した.

写真 7 病理組織所見 (Azan., ×200)

写真 8 免疫組織所見 (PAP (S-100), ×400)

考 察

神経線維腫は、神経鞘腫とともに末梢神経より生じる神経原性の良性腫瘍で、末梢神経のどの部位からも生じるとされている。そのうち、神経線維腫は von Recklinghausen 氏病の部分症状としてみられることが多く、孤立性に生じるものはまれとされている。

遠城寺ら²⁾は良性軟組織腫瘍 8,086 例のうち、孤立性神経線維腫は 354 例 (4.4%) で、このうち頭頸部に生じたものは 101 例で、口腔内に生じた症例数は定かでないが、うち顔面部に生じたものは 36 例 (0.4%) と少ない。しかし、孤立性神経線維腫でみると 354 例中、顔面部は 101 例 (28.5%) と多い。また Das Gupta ら³⁾は、1926～1963 年の 38 年間に経験した孤立性神経原性腫瘍 303 例のうち、頭頸部に生じたものは 136 例 (44.8%) と約半数を占めるが、口腔に生じたものは 19 例 (6.3%) と少ない。Docherty ら⁴⁾は 1945～1954 年に Mayo Clinic で経験した嚢胞を含む口腔の良性腫瘍 695 例について検討を加え、そのうち神経線維腫および神経鞘腫は 16 例 (2.3%) であったと報告している。本邦では、岡ら⁵⁾が 1967～1977 年の 10 年間に東北大学歯学部口腔病理学教室において経験した被験材料 2,533 例について検討を行っているが、そのうち良性腫瘍は 518 例で、うち神経原性腫瘍は神経線維腫の 6 例 (1.2%) と少なく、しかも、このなかには例数は定かでないが von Recklinghausen 氏病も含まれるため、孤立性に生じたものはさらに少ない。

当教室における 1973～1986 年の 14 年間に経験した病理組織診断の確定した良性腫瘍は 398 例で、そのうち神経原性腫瘍は 8 例 (2%) であった。その内訳は、神経鞘腫 5 例、神経線維腫 2 例、および外傷性神経腫 1 例であった。この神経線維腫の 2 例は von Recklinghausen 氏病に伴うもので、孤立性に生じたものは存在しなかった。

このように、孤立性に生じる神経線維腫は頭頸部に好発するようであるが、口腔に生じるものは非常に少ない。われわれが渉猟し得た限りでは、本邦での口腔内に生じた孤立性神経線維腫は本症例を含め 8 例であり、発症年齢は 15～33 歳 (平均 22.3 歳) で、男性 3 例、女性 5 例であり、発症部位は口唇 4 例、顎骨内 2 例、舌、口蓋は各 1 例であった⁶⁻⁹⁾。

本腫瘍の発症年齢、性差について、Nicholas ら¹⁰⁾は 25～40 歳に好発し、性差はないと報告しているが、Sow-Yeh Chen ら¹¹⁾は 49 例の神経線維腫について検討を加え、9～72 歳 (平均 39.5 歳) でわずかに女性に多かったとしている。

発現部位については、舌、頬粘膜、口蓋、口唇、歯肉、口腔底などどこにも生じ、まれに顎骨内とくに下顎骨体部に生じるといわれている¹⁰⁾。Cherrick ら¹²⁾は神経線維腫 19 例の発症部位について、頬粘膜 7 例、舌 6 例、口蓋 3 例、口唇、口腔底、歯肉各 1 例ずつであったと報告している。Wright & Jackson¹³⁾は舌、頬粘膜、歯槽部に好発するとしている。本腫瘍が末梢神経のどの部位からも生じると考えられているが、舌、頬粘膜に好発することと、外傷性神経腫の存在を考えると、外来刺激を受けやすい部位に好発するのではないかと考えられる。

神経線維腫は組織学的には Schwann 細胞、perineural cell、膠原線維の増殖よりなり、一見線維腫を思わせる像を呈する。このため線維腫、神経鞘腫との鑑別が必要である。本症例では、紡錘形の細胞と波状に配列した膠原線維の増殖よりなり、免疫組織学的には S-100 蛋白陽性細胞が散在性に認められた。この S-100 蛋白は末梢神経では Schwann 細胞のみに存在し、perineural cell には検出されないことが知られている。すなわち末梢神経では、S-100 蛋白は Schwann 細胞の主要な marker と考えられ、線維腫、神経鞘腫との鑑別を容易にするものとする。本腫瘍は頭頸部に好発するが、口腔内ではまれであることを考慮すると、線維腫と診断された症例

の中には本腫瘍が含まれているのではないかと考えられ、S-100 蛋白による免疫組織学的検索により、一層診断が確実になるものとする。

本腫瘍の処置法について、本腫瘍が周囲とは必ずしも被包化されていないため、再発防止のうえからも周囲組織を含めた外科的切除が必要とされている。われわれも同様に行い、現在まで再発の兆しなく順調に経過している。

結 語

われわれは、25歳男性で、右側硬口蓋粘膜に生じた孤立性神経線維腫の1例を経験したので報告した。

本論文の要旨は第32回日本口腔外科学会総会（昭和62年11月、東京）で発表した。

引 用 文 献

- 1) 石川梧郎監修：口腔病理学Ⅱ。改訂版，永末書店，京都，1982，592-593頁。
- 2) 遠城寺宗知，岩崎 宏，他：わが国における良性軟部腫瘍—8,086例の統計的観察。癌の臨床 20: 594-609 1974。
- 3) Das Gupta, T.K., Brasfield, R.D., et al.: Benign Solitary Schwannomas (Neurilemmomas). Cancer 24: 355 1969.
- 4) Docherty, H.B., Parkhil, E.M., et al.: Tumors

of the oral cavity and pharynx. Armed forces institute of pathology, section IV fascicle 10B, 1968, p 35, 83, 195, 263, 1968.

- 5) 岡邊治男，大久保 勉，他：東北大学歯学部口腔病理学教室における10年間の病理組織診断の集計。東北大学歯学研究 4: 25-30 1977.
- 6) Sakamoto, T., Nakanishi, S., et al.: Solitary Intraosseous Neurofibroma of the Mandible—Case Report. Wakayama Med Rep 22: 103 1979.
- 7) 山田和祐，藤田 靖，他：下顎骨に生じた孤立性神経線維腫の1例。日口外誌 29: 553-556 1983.
- 8) 山田和祐，亀井達哉，他：舌に発生した孤立性神経線維腫の1例。日口外誌 30: 1549-1552 1984.
- 9) 柳沢繁孝，大竹弘司，他：口唇部に発生した神経原性腫瘍の5例。日口外誌 31: 325-330 1985.
- 10) Nicholas, Z. and Michael, M.: Benign neurogenic tumors of the oral cavity. Int J Oral Maxillofac Surg 16: 70-76 1987.
- 11) Sow-Yeh. Chen: Neurofibroma and Schwannoma of the oral cavity. Oral Surg 47: 522-528 1979.
- 12) Cherric, H.M. and Eversole, L.R.: Benign nerve sheath neoplasm of the oral cavity. Oral Surg 32: 900-909 1971.
- 13) Wright, B.A. and Jackson, D.: Neural tumors of the oral cavity. Oral Surg 49: 509-522 1980.