口腔顎顔面領域の神経鞘腫
——臨床的病理組織学的検討——

石井 純一・神谷 貴充・和田森 匡
飯島 伸・長澤 宏和・佐藤麻衣子
岩城 博・吉増 秀實・天竺 光雄

Neurilemoma of the oral and maxillofacial region:
—— Clinicopathological study ——

Junichi ISHII・Takamitsu KAMIYA・Tadashi WADAMORI
Shin IJIMA・Hirokazu NAGASAWA・Maiko SATOH
Hiroshi IWAKI・Hidemi YOSHIMASU・Teruo AMAGASA

Abstract: Schwannoma is an uncommon tumor of the oral and maxillofacial region. Twenty-nine patients with benign solitary schwannoma of the oral and maxillofacial region are described. These tumors showed no strong predilection for either sex. The tumor occurred in patients 12 to 67 years of age; the average age at diagnosis was 38 years. The tongue is the most commonly affected site in the oral cavity. Degeneration or bleeding of the tumor was observed in 19 patients. Twenty-nine cases of the tumor were encapsulated. There was no recurrence or malignant transformation in 19 patients observed from 2 to 213 months.

Key words: schwannoma (神経鞘腫), benign tumor (良性腫瘍), degeneration of tumor (腫瘍の変性)

緒 言

末梢神経のシュワン細胞に由来する神経鞘腫はまれな腫瘍ということもあって、口腔外科領域での報告は少ない。さらに、それらも少数例の報告のみで、同一施設でのまとまった報告は本邦および国外においても多くはみられていない。

今回、われわれは当科にて治療を行った神経鞘腫29例について臨床的、病理組織学的に検討し報告する。

対 象 ・ 方 法

1976年から1999年までの24年間に東京医科歯科大学歯学

東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科・顎顔面頸部機能再建学系・顎顔面機能修復学講座・顎顔面外科学
(主任：天竺光雄教授)
Maxillofacial Surgery, Maxillofacial Reconstruction and Function, Division of Maxillofacial and Neck Reconstruction, Graduate School, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. Teruo Amagasa)
受付日：平成12年3月27日

部附属病院第1口腔外科にて治療を受け神経鞘腫と診断された30例中、頸部に発症した1例を除いた29例を対象に検討を行った。

結 果

性別は男性13例、女性16例と明らかな性差はみられなかった。初診時年齢は12歳から67歳までに広く分布し、好発年齢は明らかでなく平均年齢は37.0歳であった(表1)。発生部位は舌10例(舌背6例、舌側縁2例、舌尖1例、舌下面1例)、顎下部5例、口唇部4例、頬部4例、口底部2例、咬筋部、歯肉部、口蓋部、耳下腺部、各1例であった(表2)。

腫瘍の大きさは最大径で計測すると最大65mm、最小3mmであった。大きさ別では20mm以下のものが最も多く12例、21～40mmが11例、40mmを超えるものが6例であった(表3)。

硬さは弾性硬が14例、弾性軟が6例、記載なしが9例であった。

初診時診断は良性腫瘍が27例(腫瘍22例、多形性腺腫4例、線維腫1例)、粘液嚢胞、顎下腺炎各1例であった。治

表 1 性年齢分布

年齢	男	女	計 (%)
10～19	4	3	7 (24)
20～29	3	3	6 (21)
30～39	1	2	3 (10)
40～49	2	0	2 (7)
50～59	3	5	8 (28)
60～69	0	3	3 (10)
計	13	16	29
(%)	(45)	(55)	(100)

表 2 発生部位

部 位	例 数
舌	10
舌背	6
舌側縁	2
舌尖	1
舌下面	1
口底部	2
歯肉部	1
口蓋部	1
頬 部	4
咬筋部	1
口唇部	4
顎下部	5
耳下腺部	1
計	29

表 3 大きさ

大きさ	例数 (%)
20mm 以下	12 (41)
21～40mm	11 (38)
41mm 以上	6 (21)
計	29 (100)

表 4 病理組織学的分類

型	例数 (%)
Antoni A	18 (62)
Antoni B	7 (24)
Antoni A+B	4 (14)
計	29 (100)

表 5 腫瘍内の変性など

変性など	例 (%)
囊 胞 様 変 性	14 (47)
粘液腫様変性	9 (30)
硝子様変性	1 (3)
出 血	6 (20)
計	30 (100)

複数の変性は 8 例にみられた

療は全例手術療法を行った。腫瘍のみの摘出術は20例（うち 1 例は生検をかねた摘出）、腫瘍に周囲健常組織をつけた切除術は 9 例に行われた。

病理組織学的には、Antoni の A 型が優位にみられた症例は18例（62%）、Antoni の B 型が優位であった症例は 7 例（24%）、Antoni の A 型と B 型が同じ程度混在していた混在型は 4 例（14%）であった（表 4）。腫瘍組織内変性所見は19例（66%）にみられた。その内訳は嚢胞様変性が14 例に、粘液様変性は 9 例に、硝子様変性が 1 例、出血は 6 例にみられた。変性が複数みられたのは 8 例であった（表 5）。これらは術後の病理学的所見であり、臨床的には術前の画像診断（超音波や MRI）である程度推察されるだけであった。腫瘍の被膜の有無に関しては病理組織学的に何らかの被膜が認められた症例は28例、認められなかったのは頬部に発症した 1 例であった。この症例は大きさが20×10×10mm であったので生検をかねた手術を行った。

術後の追跡調査が可能であったのは19例で、経過観察は

最短 2 か月から最長17年 9 か月（平均 9 年 1 か月）で、再発の認められたものはなかった。

術後の合併症は 4 例にみられた。1 例は顎下腺部の腫瘍で部位は顎下腺の内側に接して存在しており、舌神経とは離れていたものの、摘出後舌の味覚障害、知覚鈍麻および運動障害がみられた。2 例目は咬筋部に発症したもので顔面神経麻痺がみられた。1 例目、2 例目ともに一過性で術後 5 か月後に回復した。3 例目は口底部に発生したもので、術後口底部に粘液嚢胞が生じたが開窓療法で治癒した。4 例目は鼻口腔瘻を形成したが閉鎖術を行い治癒した（表 6）。なお、耳下腺に発生した神経鞘腫は大きさが40×40×20mm で術前から前額部の顔面神経麻痺がみられ、顔面神経側頭枝が腫瘍内に入り込んでいたため発生母神経がそれと推察された腫瘍で、術後も神経脱落症状が 1 年以上持続し完全には回復しなかった。

表 6 術後合併症

	年齢	性	腫瘍発生部位	障 害 の 種 類	経 過
症例 1	52歳	男性	顎 下 部	味覚障害・舌知覚鈍麻・舌運動障害	術後 5 か月にて回復
症例 2	49歳	男性	咬 筋 部	顔 面 神 経 麻 痺	術後 5 か月にて回復
症例 3	53歳	女性	口 底 部	粘 液 囊 胞	術後 1 か月後に発症、6 か月 目にて開窓術施行にて治癒
症例 4	24歳	男性	口 蓋 部	鼻 口 腔 瘻	術後 9 か月後に閉鎖術

考 察

神経鞘腫はまれな疾患であり、口腔外科領域での報告は少ない。われわれは過去24年間に当科において治療した神経鞘腫30例中、頸部に発症した1例を除いた29例を中心に本邦ならびに外国文献（英語）と比較検討した。

1）性

顎顔面口腔外科領域の1934年から1982年（柳沢ら¹⁾）、1987年（黒川ら²⁾）、1988年（中村ら³⁾）の本邦におけるこれまでの文献を検索した報告によると男女比はそれぞれ83：102、80：110、91：125とやや女性が多い傾向であった。外国文献では Das Gupta⁴⁾ が自験例303例の全身に発症した症例について131：172で女性に多く、Reddick⁵⁾ は頸部迷走神経の神経鞘腫39例で21：18と男性に多いと報告している。Hatziotis⁶⁾ は女性に多く、Enzinger⁷⁾ は男女差なし、Kun⁸⁾ は、24：25で男女差なしと報告している。以上をまとめると口腔顎顔面領域および全身において性差なしか、やや女性に多いようで、自験例でも14：16（1：1.14）と本邦での報告と類似していた。

2）年齢

上記3名の本邦における文献報告例^{1～3)} ではいずれも10～29歳が多く全体の53%を占めていた。外国文献では Hatziotis⁶⁾ は110例中67%が10～20歳であり、Kun⁸⁾ は20～30歳台が多く（平均44.2歳）、また、Williams⁹⁾ は10～60歳台が多く、平均39.5歳であったと報告している。自験例では全年齢にわたって分布しており、平均は37歳と本邦報告例よりやや高齢であった。

3）部位

本邦におけるこれまでの文献を検索した報告ではいずれも舌が圧倒的に多く35～44%を占めており2位以下は各報告者により異なっており、柳沢ら¹⁾ は下顎骨と口唇が8.6%、黒川ら²⁾ は口底が9.7%、中村ら³⁾ は頬部、頬骨部、側頭下窩が8.6%であった。外国文献でも Gallo ら¹⁰⁾ は157例で舌が45.2%、ついで、頬部が13.3%であったと報告している。Das Gupta⁴⁾ は頭頸部136例中、頸部が60例と最も多く、次いで耳下腺10例、頬部9例であり舌は咽頭部と並ん

で8例と4番目であった。Kun ら⁸⁾ は49例中、舌が11例で頸部（18例）に次いで多かったと述べている。当科でも舌が全体の1／3を占めており、最も多かった。以上より口腔内では舌は好発部位であることがわかる。舌に多い理由は不明であるが、中村ら³⁾ も不明ではあるとしながらも、舌は可動性で刺激を受けやすく腫瘍の発育、増殖を引き起こしやすいこと、比較的発見されやすいことが関連していると考えられると推察している。

4）大きさ

本邦におけるこれまでの文献では大きさの表現は正確ではなく、拇指頭大および小指頭大が53%（102／192）を占めていたと記載されている²⁾。山崎ら¹¹⁾ は部位により大きさが異なると述べており、顎下部や口底部は大きく、その他は2～3cm前後であるといっている。Williams ら⁹⁾ は12例中頸部の5cmの1例を除くと10mm以下が9例と述べている。自験例では20mm以下が最も多く同様の傾向であった。

腫瘍の大きさは発生部位と体表からの深さに関係すると思われる。鈴木ら¹²⁾ は第6頸神経根より発生し頸椎を破壊した4.7×3.0×2.4cm、および上位頸椎付近から発生し副咽頭間隙、咽頭後部まで進展した5.0×5.0×3.0cmと5.5×3.5×3.0cmの2つに分けて摘出した大きな神経鞘腫を報告している。すなわち、発見されやすいところおよび体表に近い部位にできれば小さいうちに発見される確率が大きくなると思われた。

5）臨床診断

初診時あるいは術前診断について、文献上の記載は少なく、Kun ら⁸⁾ の報告によれば術前診断が正しかったのは49例中4例のみであったと述べている。当科の症例では全例神経鞘腫とは正しく診断できなかった。そこで、当科の最近の数例の症例で超音波像を retrospective に検討してみると、境界平滑の低エコー域で後方エコーの増強のみられるものが多かったが、各種変性により内部エコーの変化が認められた¹³⁾。しかし、術前に診断するのは難しいと考えられ今後、画像診断のこの方面の貢献が期待される。

6) 病理組織所見

本邦の報告では黒川ら²⁾は Antoni の A 型が61% (78/128), Antoni の B 型が5% (6/128), A 型と B 型の混合が34% (44/128) であったと述べている。自験例では Antoni の B 型 (主として B 型が優位を占める) が28%と比較的多く, 混合型 (13%) が少なかった。しかし Antoni の B 型に分類するか混合型に分類するかによって A 型と B 型の混合型と B 型との比率が変わると考えられ, この相違は各著者により診断基準が異なることが原因ではないかと考えられた。Antoni の A 型が圧倒的に多いということは文献上からも自験例ともに一致していた。

これまでの文献ではあまり検索されていないようであるが, 腫瘍内部に嚢胞様変性や粘液変性など何らかの変性が認められた症例は63%と高率にみられたことがこの腫瘍の特徴と考えられた。

被膜の有無についての記載では, 本邦での多数例の報告はなく, わずかに Williams ら⁹⁾によると12例全例で真の被膜をもっていたと記載されているのみである。自験例でも不十分な摘出術になった1例を除き全例に被膜が認められたことより, 被膜の存在も本腫瘍の特徴の1つであると考えられた。

7) 再発, 悪性化

自験例の2か月から17年9か月の術後経過観察中に再発の認められたものはなかったが, 黒川ら²⁾の本邦の文献による口腔顎顔面領域の検索では216例中1例のみ再発が報告されている。一方, Das Gupta⁴⁾は303例中, 前頸部に発生した神経鞘腫1例が切除2年後に悪性神経鞘腫として再発したと述べている。Carstens ら¹⁴⁾は被膜に包まれた神経鞘腫の中の一部が悪性化していた症例を報告している。一方, Kun ら⁸⁾によると49例の症例で口腔のみで6例が再発し, うち2例が悪性化したとの報告もある。これらはいずれも不完全な切除や摘出が行われており, 適切な治療がなされなかった可能性がある。したがって, 適切な処置を行えば悪性化あるいは再発はまれなものと考えられた。

結 語

過去24年間に当科で治療を行った神経鞘腫30例中, 頸部に発症した1例を除いた29例を検討したところ以下の結果であった。

1) 性別については男女ほぼ同数であった。年齢分布は12歳から67歳までで, いずれも本邦の過去の報告とほぼ同様であった。

- 2) 口腔では舌に発症する頻度が高かった。
- 3) 腫瘍内部の変性, 出血が過半数の腫瘍にみられた。
- 4) 29例中28例では病理学的に被膜が認められた。
- 5) 経過観察の行われた19例では再発, 悪性化例はなかった。

なお, 本論文の要旨は第52回日本口腔科学会総会 (平成10年4月16日, 愛媛) において発表した。

引 用 文 献

- 1) 柳沢高道, 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.
- 2) 黒川英雄, 津留昭二, 他: 神経鞘腫の5例. 日口外誌 36: 1764-1775 1990.
- 3) 中村 篤, 斎藤健一, 他: 舌下面に発生した神経鞘腫の1例. 日口外誌 31: 2218-2222 1985.
- 4) Das Gupta, T.K., Brasfield, R.D., et al.: Benign solitary schwannomas (neurilemmomas). Cancer 24: 355-366 1969.
- 5) Reddick, L.P. and Myers, R.T.: Neurilemmomas of the cervical portion of the vagus nerve. A collective review and two case report. Am J Surg 125: 744-747 1973.
- 6) Hatziotis, J. C. and Asprides, H.: Neurilemmoma (schwannoma) of the oral cavity. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 24: 510-526 1967.
- 7) Enzinger, F.M. and Weiss, S.W.: Soft tissue tumours. 2nd Ed, Mosby Co, St. Louis, 1988, p719-757. (9)より引用)
- 8) Kun, Z., Dao-Yi, Q., et al.: A comparison between the clinical behavior of neurilemmomas in the neck and oral and maxillofacial region. J Oral Maxillofac Surg 51: 769-771 1993.
- 9) Williams, H.K., Cannell, H., et al.: Neurilemmoma of the head and neck. Br J Oral and Maxillofac Surg 31: 32-35 1993.
- 10) Gallo, W. J., Moss, M., et al.: Neurilemmoma: review of the literature and report of five cases. J Oral Surgery 35: 235-236 1977.
- 11) 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.
- 12) 鈴木智雄, 澤井薫夫, 他: 頸椎を破壊した頸部神経鞘腫2例の手術経験. 耳鼻臨床 84: 369-376 1991.
- 13) 石井純一, 長澤宏和, 他: 口腔顎顔面領域神経鞘腫の超音波像—病理所見との比較—. 超音波医学 27: 219-223 2000.
- 14) Carstens, P.H.B. and Schrodt, G.R.: Malignant transformation of a benign encapsulated neurilemmoma. Am J Clin Pathol 51: 144-149 1969.