舌下面に生じた孤立性神経鞘腫の1例および電顕的検索

君島 裕・佐藤泰則・安藤俊史
高橋雅幸・黒川英人・納富武則

Solitary neurilemmoma in the base of the tongue: A case report and ultrastructural study

Yutaka KIMIJIMA・Yasunori SATO・Toshifumi ANDOU
Masayuki TAKAHASHI・Hideto KUROKAWA・Takenori NOUTOMI

Abstract: Neurilemmomas are rare benign tumors of the oral cavity originating in the sheath of Schwann. Intraoral neurilemmomas are frequently located in the tongue in the head and neck region; rarely, they have been found in the base of the tongue. Ultrastructural studies of neurilemmomas provide morphological evidence supporting the concept that these lesions originate from Schwann cells. We treated a patient with a solitary neurilemmoma in the right side of the base of the tongue and investigated the features of this tumor by electron microscopy.

The patient was a 17-year-old boy with a solitary mass in the right side of the base of the tongue. The mass measured 10×10×8 mm. The lesion had a clearly demarcated border and was hard and elastic. The mass was surgically resected with the patient under local anesthesia. The histopathological diagnosis was neurilemmoma. Ultrastructural studies showed a complicated interdigitation of cytoplasmic processes, a continuous basal lamina, and Luse bodies. These findings suggest that the tumor originated from Schwann cells.

Key words: solitary neurilemmoma (孤立性神経鞘腫), base of the tongue (舌下面), Schwann cell (シュワン細胞), ultrastructural study (電顕的検索)

緒 言

神経鞘腫はシュワン細胞由来の良性腫瘍で、顎口腔領域での発生は比較的まれとされている¹⁾。顎口腔領域では舌が好発部位とされているものの²⁻⁴⁾、舌下面に発生するのはまれである⁵⁾。電顕的検索から腫瘍の微細構造を検討し、神経鞘腫の由来細胞を明らかにすることができ電顕的検索の有用性が報告されている⁶⁾が、口腔領域での報告は少ない。今回われわれは、舌下面に生じた孤立性神経鞘腫の1例を経験し電顕的検索をも行ったので、その概要とともに若干の考察を加え報告する。

症 例

患 者：17歳、男性。
初 診：平成12年8月■日。

防衛医科大学校歯科口腔外科
(主任：佐藤泰則教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, National Defense Medical College (Chief: Prof. Yasunori Sato)

受付日：平成13年8月15日

主 訴：舌下面の腫瘍。

現病歴：2～3年前より舌下面に米粒大の固い腫瘍があるのに気づいていたが、疼痛などの明らかな自覚症状がなため放置していた。平成12年7月頃より次第に腫瘍が増大し、違和感も強くなってきたため、8月に近くの病院耳鼻咽喉科を受診し、腫瘍で手術が必要と診断されたが、本人の都合により平成12年8月■日に当科を受診した。

現 症：

口腔外所見：異常所見なし。

口腔内所見：右側舌下面に10×10×8 mm大の境界明瞭な弾性硬の腫瘍が認められ、可動性があり周囲組織との癒着はなかった(写真1)。舌の運動障害や知覚麻痺などの神経症状は認められなかった。

臨床診断：右側舌下面の良性腫瘍。

処置および経過：平成12年8月■日に外来で局所麻酔下にて舌腫瘍切除術を施行した。腫瘍の周囲組織を一部付着させて一塊として切除した。切除部位に明らかな神経の露出はなく、切除後に知覚麻痺などの神経症状はみられなかった。現在まで術後1年2か月を経過したが再発はなく

写真1 初診時の口腔内写真
右側舌下面に腫瘤を認める(矢印).

写真2 切除物写真
病変は被膜に覆われほぼ球形を呈している.

写真3 病理組織像(H-E染色)

- a 弱拡大像
上皮下間質の横紋筋線維直上に結節性病変がみられ、線維性の被膜を有している.
- b 強拡大像
紡錘形の細胞が増殖し、観兵式様の配列がみられる.

経過は良好である.

切除物所見: 切除物は球形を呈しており、弾性硬であった(写真2). 周囲は厚い被膜で被われ、被膜の欠損部位は認められず、断面は灰白色で充実性であった.

病理組織学的所見: 弱拡大像では、直径約10mmの結節状病変が上皮下間質の横紋筋線維直上にあり、線維性の被膜を有していた(写真3a). 強拡大像では、類円形ないし紡錘形の核を有する紡錘形の細胞が束状をなして増殖し、核の観兵式様の配列が認められた(写真3b).

病理組織学的診断: 神経鞘腫.

電顕所見: 腫瘍細胞は縦断面では紡錘形を呈し、横断面では楕円形を呈していた. 核は明調で類円形を呈するものや一部深い切れ込みがみられるものもあり、腫瘍細胞は非常に細長い細胞質突起をもつものが多く、複雑に絡み合う像がみられた(写真4a). また、その細胞質突起を含め細胞周囲は比較的厚い基底膜で覆われていた(写真4b). 腫瘍細胞から突出した細胞突起は渦巻き状を呈するものもあ

り、また腫瘍細胞は髄鞘と正常なシュワン細胞に形態上非常に類似している像も観察された(写真5a). さらに、シュワン細胞由来の腫瘍細胞にみられるとされる周期性の横紋を有する long spacing collagen (いわゆる Luse body⁷⁾) が基質中に散見された(写真5b).

以上の電顕所見から、増殖の主体をなす細胞はシュワン細胞由来であることが確認された.

考 察

神経鞘腫は有髄神経の分布するいずれの部位にも発生し、欧米の報告では顎口腔領域での発生頻度は神経鞘腫全体の9%とするものがあるものの¹⁰⁾、本邦では顎口腔領域での発生頻度は0.5~4.3%^{1, 8, 9, 11, 12)}と比較的低いとされている. 本邦における口腔領域の神経鞘腫の発生頻度が低いとされる一因として、神経鞘腫は被膜に覆われ周囲組織との癒着がほとんどない無痛性の腫瘤として生じるため、口腔粘膜に生じた場合には粘液嚢胞、線維性ポリープ、

写真4 電顕写真

- a 核は明調で類円形を呈している (*). 細長い細胞突起の複雑な嵌合 (矢印) がみられる.
- b 細胞周囲に基底膜 (BM) (矢印) がみられる.

写真5 電顕写真

- a 渦巻き状を呈する細胞質突起がみられ、髄鞘と正常なシュワン細胞に形態上非常に類似した像がみられる (矢印).
- b Long spacing collagen (Luse body) (矢印) が基質中にみられる.

乳頭腫など他の良性疾患と臨床診断されたり、また容易に剥離摘出ができるので手術のみが行われて病理組織学的に検索がされないまま治療が終了し、症例として報告されていないものが多いのではないかとことがあげられてい

る^{8,13)}. 本腫瘍を見逃さないためには、神経鞘腫の臨床症状を把握し、口腔粘膜にも本腫瘍が発生しうることを十分に考慮して日常の口腔外科診療を行う必要があると思われる.

口腔領域における好発部位は舌が多く次いで頬粘膜、口蓋、口底、口唇といわれている¹⁴⁾. 舌に好発する理由として舌の可動性により刺激を受けやすいこと、外傷を受けやすいことなどが考えられている¹⁵⁾が、舌の部位による発生頻度については、部位により異なるとする報告⁵⁾や差がないとする報告^{16,17)}がある. 発生部位として舌下部と記載された本邦の既報告例のなかには、われわれが報告例を再確認したところ、部位的には口底部の神経鞘腫であるものが含まれていた. それらを除外してわれわれが検索し得た舌下面に発生した神経鞘腫の報告例は、本邦で口腔領域の神経鞘腫が初めて報告された1934年から現在まで、自験例を含め11例 (表1) にすぎず^{5, 18~26)}, 舌下面に生じることはまれと思われる. 11例の平均年齢は24.2歳で青壮年に多くみられ、性別では女性が7例で男性に多くみられた. 顎口腔領域に発生した神経鞘腫の臨床統計報告では、10代20代が過半数を占め、性差はやや女性に多いといわれており^{1, 5, 17)}, 舌下面症例の検索結果もほぼ一致しており、舌下面に発生する神経鞘腫の年齢性差に特異的な傾向は認められなかった.

病理組織学的には一般に束状型 (Antoni の A 型) と網状型 (Antoni の B 型) に大別されるが、両者は混在することも少なくない. Antoni の A 型では、紡錘形ないし楕円形の核を有する双極性の細長い細胞が密に束状をなして増殖し、または渦巻き状に配列し、しばしば核の特有な柵状あるいは観兵式様の配列を示す¹⁴⁾. 自験例でも

同様の所見が観察され、Antoni の分類では A 型であった. 本邦での舌下面に生じた神経鞘腫の報告例11例では A 型と AB 混在型のみで B 型の報告例はみられなかった.

神経組織由来腫瘍の微細構造が電顕的に検索されている

表1 本邦での舌下面神経鞘腫の報告例

	報告者	報告年	年齢(歳)	性	大きさ(mm)	主 訴	Antoni 分類
1	蜂須賀 ¹⁸⁾	1937	13	女	21.5×16.5×18.5	舌運動障害	A, B
2	町井ら ¹⁹⁾	1951	17	男	23×11	不 明	A
3	大和田ら ²⁰⁾	1958	22	女	35×35×32	腫瘤, 発音障害	A
4	三村ら ²¹⁾	1972	12	女	18×15×13	無痛性腫瘤	A
5	下里ら ²²⁾	1976	22	女	10×20	舌運動障害	A
6	井上ら ²³⁾	1985	14	女	10×17×12	腫 瘤	A, B
7	西沢ら ²⁴⁾	1988	16	男	径20	舌運動障害	A, B
8	森本ら ⁵⁾	1990	40	女	20×15×12	腫 瘤	A, B
9	本村ら ²⁵⁾	1992	19	女	15×15×17	腫 脹	A, B
10	横林ら ²⁶⁾	1996	16	男	径25	不 明	A
11	自験例	2001	17	男	10×10×8	腫 瘤	A

が⁶⁾, 口腔領域に発生した神経鞘腫の電顕的検索の報告は少ない^{11, 22)}. 神経鞘腫の電顕的特徴としては細長い細胞質突起, 細胞全周にわたって存在する基底膜, 細胞間に散在するLuse bodyといわれている⁷⁾. さらに, しばしば細胞膜は種々の大きさの細胞内陥入を形成し, この陥入は基底膜を伴うといわれている^{6, 7, 11, 21, 27)}. 今回の症例の電顕的検索ではこれらの特徴のすべてが確認された. また腫瘍細胞は髄鞘と正常なシュワン細胞に形態上非常に類似している像も観察され, 電顕的検索を追加することによりシュワン細胞由来の腫瘍であることが確認できた.

稿を終えるにあたり, 本症例の電顕的検索につきご協力頂きました, 防衛医科大学校共同利用研究施設電子顕微鏡室の市来やよい技官に感謝申し上げます.

本論文の要旨の一部は, 第170回日本口腔外科学会関東地方会(平成12年12月■日, 東京都)において発表した.

引 用 文 献

- 1) 亀谷明秀, 中谷善幸, 他: 歯槽粘膜に発生した神経症腫の1例. 日口外誌 27: 263-271 1981.
- 2) Hatziotis, J. Ch. and Asprides, H.: Neurilemmoma (schwannoma) of the oral cavity. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 24: 510-526 1967.
- 3) 平沼康彦, 亀井靖之, 他: 舌に生じた神経鞘腫の1例. 城歯大紀要 11: 469-479 1982.
- 4) 長田正信, 豊嶋 宏, 他: 舌に発生した神経鞘腫の1例. 日口外誌 27: 88-94 1981.
- 5) 森本賢治, 白崎英明, 他: 舌下面に発生した神経鞘腫—症例と文献的考察. 耳鼻 35: 889-895 1989.
- 6) Erlandson, R.A. and Woodruff, J.M.: Peripheral nerve sheath tumors: an electron microscopic study of 43 cases. Cancer 49: 273-287 1982.
- 7) Luse, S.H.: Electron microscopic studies of brain tumors. Neurology 10: 881-905 1960.
- 8) 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.
- 9) 吉村和子, 亀山忠光, 他: 口底部に発生した神経鞘腫の1例. 日口外誌 28: 1216-1219 1982.
- 10) Das Gupta, T.K., Brasfield, R.D., et al.: Benign solitary schwannomas (neurilemmomas). Cancer 24: 355-358 1969.
- 11) 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.
- 12) 菊池正明, 三浦英子, 他: 舌神経鞘腫の1例. 日口外誌 25: 419-421 1979.
- 13) Williams, H.K., Cannell, H., et al.: Neurilemmoma of the head and neck. Br J Oral Maxillofac Surg 31: 32-35 1993.
- 14) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 第2版, 永末書店, 京都, 1984, 590-591頁.
- 15) 金沢正明, 原 邦穂, 他: 神経線維腫と神経鞘腫. 口科誌 17: 587-593 1968.
- 16) 佐々木邦, 谷垣内由之, 他: 舌根部神経鞘腫の1例. 口咽科 10: 387-392 1998.
- 17) 久我むつみ, 遠藤壮平, 他: 舌神経鞘腫例. 耳鼻臨床 88: 891-898 1995.
- 18) 蜂須賀正雄: 舌二発生セル「ノイリノーム」ノ一例. 口病誌 12: 326-329 1938.
- 19) 町井浩一, 川島 尚: 舌ノイリノームの2例. 耳鼻臨床 44: 184-187 1951.
- 20) 大和田一郎, 松岡哲郎, 他: 舌に発生せるノイリノームの4症例. 耳展 1: 235-240 1958.
- 21) 三村幸弘, 大橋道三: 舌神経鞘腫症例(抄). 日耳鼻 75: 268-269 1972.
- 22) 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: 396-409 1976.
- 23) 井上智加, 吉武一貞, 他: 舌下面に発生したSchwannomaの一症例. 滋賀歯学 2: 42-44 1985.
- 24) 西沢波子, 井家久雄, 他: 舌に単発した神経鞘腫の一例(抄). 皮膚科紀要 83: 237 1988.
- 25) 本村二郎, 牧 正啓, 他: 舌下面に発生した神経鞘腫の1例(抄). 口科誌 41: 606 1992.
- 26) 横林康男, 日出嶋康博, 他: 舌に生じた神経鞘腫の1例. 新潟歯学会誌 26: 197-199 1996.
- 27) Waggener, J.D.: Ultrastructure of benign peripheral nerve sheath tumor. Cancer 19: 699-709 1966.