口底部に生じた巨大な神経鞘腫の1例

加藤 広 裕・能 崎 晋 一・田 中 彰
長 谷 剛 志・中 川 清 昌・山 本 悦 秀

A case of a large neurilemmoma in the floor of the mouth

Koroku KATO・Shinichi NOZAKI・Akira TANAKA
Takashi HASE・Kiyomasa NAKAGAWA・Etsuhide YAMAMOTO

Abstract: Neurilemmoma is a benign tumor derived from abnormal growth of Schwann cells. We report a case of a large neurilemmoma in the oral cavity. A 60-year-old man was referred to our department because of a tumor in the right side of the mouth floor. Clinically, the tongue was deviated to the left by the tumor, and magnetic resonance imaging showed a large oval mass. The clinical diagnosis was a benign tumor. The tumor was excised intraorally under general anesthesia. The excised specimen had a yellow-brownish surface, measured 65×42×35 mm, and weighed 49 grams. The histopathological diagnosis was a neurilemmoma. The postoperative course of the patient has been good for 3 months.

Key words: neurilemmoma (神経鞘腫), benign tumor (良性腫瘍), floor of the mouth (口底部)

緒 言

神経鞘腫は有髄神経の神経鞘の外胚葉成分である Schwann 細胞の異常増殖による良性腫瘍であり、軟部腫瘍のなかでは血管腫、脂肪腫に次いで多くみられ、神経が存在する部位であればいずれの部位にも発生する。特に頭頸部領域は神経鞘腫の好発部位で、全体の約30%を占め、そのうち顎口腔領域に限定すると、その頻度は約4%とされる¹⁾。その多くは舌にみられ、口底部に発生することは比較的まれで、またその腫瘍の長径は20~30mm程度とされている。

今回、われわれは口底部に発生した長径60mmを越える巨大な神経鞘腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：60歳、男性。

初 診：2002年1月。

主 訴：右側口底部の無痛性腫脹。

金沢大学医学部医学系研究科がん医科学専攻がん細胞学講座
細胞浸潤学分野（歯科口腔外科）
（主任：山本悦秀教授）

Oral & Maxillofacial Surgery, Department of Cell & Tissue Biology, Division of Cancer Medicine, Kanazawa University Graduate School of Medicine
(Chief: Prof. Etsuhide Yamamoto)

受付日：2002年7月10日

採択日：2002年10月22日

既往歴および家族歴：特記事項なし。

現病歴：3年半程前に、右側口底から舌下にかけて無痛性の腫脹があることに気づく。その後徐々に増大していたが放置していた。2年程前に下顎大臼歯が腫瘍に接触し、疼痛が出現したため近くの歯科医院を受診したところ、65を抜歯された。その後も腫瘍は緩徐に増大していたが、疼痛が認められないため放置していた。平成14年1月26日、某医院を受診した際、口底部の腫瘍を指摘され、精査必要との説明を受け、当科を紹介された。

現 症：

全身所見：体格中等度、栄養状態良好で、特に異常所見は認められなかった。

口腔外所見：顔貌は左右対称で、右側顎下部ならびに顎下リンパ節の腫脹は認められなかった。

口腔内所見：右側口底部に小児手拳大、弾性硬で可動性の腫瘍を触知。表面の粘膜の色調は正常色で、波動は触れなかった。また同側の舌下小丘は確認できなかった。舌は腫瘍の増大により健側に圧排され、運動制限や発音障害が認められたが、知覚麻痺は認められなかった（写真1）。

X線検査所見：パノラマX線写真にて唾石や異物などの異常所見は認められなかった。

MR所見：前額方向のMR画像にて右側口底部に縦長の卵円状で境界明瞭な巨大な腫瘍を認めた。T1強調画像にて筋肉よりもやや低信号で、T2強調画像にて不均一に

写真1 初診時口腔内写真
舌が腫瘍により圧排され健側に偏位している。

写真3 切除標本断面
黄白色、充実性で、中央部に出血がみられる。

写真5 病理組織像 (H-E 染色, ×400)
腫瘍細胞の核が柵状に配列している Antoni A 型。

写真2 初診時前額断 MR 画像
T2 強調画像では右側口底部に境界明瞭、不均一に高信号を呈する巨大な腫瘍性病変を認めた。

写真4 病理組織像 (H-E 染色, ×100)
紡錘形の腫瘍細胞からなり、核の柵状配列を示す Antoni A 型と、細胞が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 Antoni B 型が混在している。

写真6 病理組織像 (H-E 染色, ×400)
腫瘍細胞がまばらに配列している Antoni B 型。

高信号であった。全体として造影剤が不均一に染まり、隔壁様構造を認めた。舌は圧排・偏位しているのみであり、明らかな舌への腫瘍の浸潤は認められず、また、隣接する下顎骨の骨皮質の吸収像も認められなかった (写真2)。

臨床検査所見：血液一般、血清生化学検査において異常値は認めなかった。

臨床診断：右側口底部良性腫瘍。

処置および経過：臨床所見および MR 画像所見から良性の唾液腺腫瘍または神経原性腫瘍が疑われたことから、敢えて生検を行わず、全摘出術の方針を採用した。2002年3月、全身麻酔下で腫瘍切除術を施行した。腫瘍直上の粘膜に切開を加え、鈍的に剥離したところ、粘膜下に黄褐色の腫瘍が確認できた。腫瘍周囲は一層の被膜に覆われており、腫瘍と周囲組織との癒着はなく、剥離は容易であった。腫瘍の後下方に舌下腺組織が存在していたため腫瘍と一塊にして切除した。

切除標本所見：腫瘍の表面は被膜に覆われており滑沢で黄褐色を呈し、大きさは直径65mm×42mm×35mm、重さ

は49gであった。断面所見では黄白色、充実性で、中心部には出血が認められた (写真3)。

術後経過：術後、患側の舌体の一部に味覚異常、知覚麻痺が出現したが、徐々に軽快した。

病理組織学的所見：腫瘍は線維組織よりなる被膜に覆われており、組織学的には、紡錘形の腫瘍細胞からなり、核の柵状配列を示す Antoni A 型と、細胞が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 Antoni B 型が混在していた。なお核の分裂像は認められなかった (写真4, 5, 6)。

病理組織学的診断：神経鞘腫 (Antoni A 型, B 型の混在型)。

考 察

神経鞘腫は、有髄神経の Schwann 細胞から発生する外胚葉性腫瘍として、1910年に Verocay²⁾ により neurinoma の名称で初めて報告され、その後 schwannoma, neurilemmoma が同義語として用いられている。

表1 本邦における口底部神経鞘腫の報告例

No	報告者	報告年	年齢	性	部位	受診までの期間	自覚症状	大きさ	Antoni 型
1	葛西 ¹²⁾	1957	44	M	口底	1か月	舌下部の腫脹	—	A
2	朱雀ら ¹³⁾	1965	18	F	右側口底	5年	舌下部の腫脹	31×43×27mm	A
3	金沢ら ¹⁴⁾	1968	19	F	右側口底	1か月	舌運動障害	—	A
4	黒田ら ¹⁵⁾	1969	20	F	左側舌下	4日	「7」の疼痛	35×34×28mm	A
5	松田ら ¹⁶⁾	1976	48	F	右側舌下・口底	6か月	右側口底部腫脹	—	A
6	吉村ら ¹⁷⁾	1982	41	M	右側口底	2か月	右側顎下部腫脹	47×31×21mm	—
7	北野ら ¹⁸⁾	1983	33	M	左側口底	1日	舌運動障害	鶏卵大	A+B
8	長谷川ら ¹⁹⁾	1984	63	F	右側口底	3か月	右側舌下部腫脹	15×17×12mm	A+B
9	山岸ら ²⁰⁾	1985	72	M	右側口底	2年	右側口底部腫脹	27×21×17mm	A+B
10	和田ら ²¹⁾	1987	19	F	左側口底	—	口底部腫脹	37×31mm	A+B
11	同上	同上	21	M	左側口底	—	口底部腫脹	—	A
12	宮崎ら ²²⁾	1988	72	F	右側口底	4年	右側舌下部腫脹	50×40×50mm	A+B
13	高橋ら ²³⁾	1989	48	F	右側口底	6か月	口底部腫脹	クルミ大	—
14	大木ら ²⁴⁾	1992	83	F	口底	—	口底部腫脹	43×40×38mm	A
15	中村ら ²⁵⁾	1995	74	F	右側口底	10年	口底部腫脹	41×12×10mm	B
16	西村ら ²⁶⁾	1997	78	F	右側口底	10日	右側口底部腫脹	25×15×15mm	A+B
17	平田ら ²⁷⁾	1999	80	M	左側舌下・口底	2日	舌下, 口底部腫脹	33×58mm	A+B
18	清水ら ²⁸⁾	1999	40	M	右側舌下・口底	20年	右側舌下部腫脹, 疼痛	—	A+B
19	川合ら ²⁹⁾	2000	25	F	右側口底	2か月	左側顎下部, 口底部違和感	9×7×8mm	A
20	自験例	2002	60	M	右側口底	3.5年	口底部腫脹	65×42×35mm	A+B

本腫瘍は全身のあらゆる部位に発生する可能性があり、発生頻度は良性軟部組織腫瘍において10.2%と、血管腫20.1%、脂肪腫19.8%について高く、その発生部位は頭頸部領域、特に頸部での頻度が最も高く19.5%と報告されている¹⁾。これは本腫瘍が特に脊髄神経、聴神経から発生しやすいことに関連していると推測される。

しかし本腫瘍の顎口腔領域での発生頻度については、比較的少ないとの報告が多く^{3~5)}、その発生部位は舌が圧倒的に多く、石井ら⁶⁾は35~44%を占めていると報告している。しかし、舌に次いで発生頻度の高い部位は各報告者によって異なっており、一般的に口底部は頬粘膜、口蓋、歯肉、口唇とともに比較的にまれな部位とされている^{7~9)}。今回の症例は臨床およびMR所見から、発生部位を口底部とした。

性差についてはほとんど男女差がなく、好発年齢は10~20代に多いと報告されている^{9~11)}。しかし、これまでに論文として報告された口底部神経鞘腫においては男性よりも女性に多く、男女比は1:1.5であった(表1)^{12~29)}。また、口底部に発生した神経鞘腫の平均年齢は47.9歳で、中高年層に発生しており、一般的な好発年齢に比べ高齢者に発生する傾向にあった。

顎口腔領域神経鞘腫を有する患者のほとんどは腫瘍形成または腫脹を主訴として受診するが、舌や頬粘膜、歯肉は比較的小さな腫瘍でも自覚でき、腫瘍の存在による変形や運動障害が発見されやすいため、診療を受けるまでの期間

が早い傾向にある。したがって舌などに発生した本腫瘍は、長径20~30mm前後の報告が多い。一方、口底部や頸部では腫瘍がある程度の大きさまで発育しないと自覚することが困難なため、治療を受けるまでの期間が比較的遅いと考えられる。口底部に発生した場合には、自覚症状の発現から来院するまでの期間にはかなりのばらつきがみられるが、その多くは長径30mmを越えている。とはいえ、50mmを越える症例はまれで、舌下部を含め口底に発生した本腫瘍の本邦報告例では本例が最大(長径62mm, 49g)と思われる。

これまでも顎口腔領域の巨大な神経鞘腫の報告例はある^{30, 31)}が、軟口蓋咽頭や側頭下窩などの深部腫瘍であり、口底発症例で60mm以上にまで大きくなった要因の1つとして、腫瘍自覚後も疼痛がなく放置していた間に上方に発育すると同時に下方の舌下隙にも発育したためと考えられる。

口底部に発生した本腫瘍の由来神経として、三叉神経、舌咽神経、迷走神経、舌下神経、舌神経、顔面神経(鼓索神経)、副神経などが考えられるが、一般に口底部のみならず顎口腔領域における神経鞘腫の由来神経を明らかにできた症例は少なく^{26, 32, 33)}、これを確認することは困難な場合が少なくないとされている。この理由として本腫瘍は無痛性、発育は緩慢であり、由来神経の機能障害をほとんど認めないからである。本症例の場合も由来神経を確定するにはいたらなかったが、術後患側の味覚異常、知覚麻痺が出現し

たことより舌神経由来であろうと推察した。

本腫瘍の病理組織学的分類は、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、しばしば核が特有な柵状あるいは観兵式様の配列を示す Antoni A 型、まばらで不規則に配列した細胞が多極性の細胞質突起をもって互いに連絡し、しばしば泡沫細胞の出現、粘液様変性、出血、嚢胞形成を伴う Antoni B 型、その Antoni A 型と B 型の混合型が存在し、顎口腔領域においては Antoni A 型が多く、混合型がこれに次ぎ、Antoni B 型はまれとされている^{9, 11, 22)}。自験例を含む過去の口底部神経鞘腫の報告20例のうち、病理組織学的所見が記載されている18例を分析してみても、Antoni A 型が8例、Antoni B 型1例、混合型が9例と Antoni B 型はまれで、自験例は混合型であった(表1)。

本腫瘍の治療については、切除術が一般的であるが、切除は本腫瘍が被膜に覆われているため比較的容易である。その予後は良好であるとされているが、きわめてまれに再発や悪性化するとの報告もある。自験例については再発の徴候を認めず、経過良好であるが、今後さらなる経過観察が必要と思われる。

引用文献

- 1) 遠城寺宗知, 岩崎 宏, 他: わが国における良性軟部組織腫瘍—8086例の統計的観察—. 癌の臨床 20: 594-609 1974.
- 2) Verocay, J.: Zur Kenntnis der Neurofibrome. Ziegler Beitrage zur path Anat 48: 1-69 1910.
- 3) Bruce, K.W.: Solitary neurofibroma (Neurilemmoma, Schwannoma) of the oral cavity. J Oral Surg 7: 1150-1159 1954.
- 4) Kragh, L.V., Soule, E.H., et al.: Benign and malignant neurilemmoma of the head and neck. Surg Gynecol Obstet 11: 211-218 1960.
- 5) 百井一郎: 神経鞘腫の病理学的研究. 新潟医誌 69: 737-756 1955.
- 6) 石井純一, 神谷貴充, 他: 口腔顎顔面領域の神経鞘腫—臨床的病理組織学的検討—. 日口外誌 47: 89-92 2001.
- 7) Gallo, W.J., Moss, M., et al.: Neurilemmoma; review of the literature and report of five cases. J Oral Surg 35: 235-236 1977.
- 8) 亀谷明秀, 中谷善幸, 他: 歯槽粘膜に発生した神経鞘腫の1例. 日口外誌 27: 263-271 1981.
- 9) 黒川英雄, 津留昭二, 他: 神経鞘腫の5例. 日口外誌 36: 1764-1775 1990.
- 10) 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: 1764-1775 1988.
- 11) 中村 篤, 齋藤健一, 他: 舌下面に発生した神経鞘腫の1例. 癌の臨床 31: 2218-2222 1985.
- 12) 葛西 真: 口腔底 Neurinoma の1例. 耳鼻臨床 4: 57-60 1957.
- 13) 朱雀直道, 千野武広, 他: 口腔底に発生した神経鞘腫の1例. 口科誌 14: 159-163 1965.
- 14) 金沢正昭, 原 邦穂, 他: 神経線維腫症と神経鞘腫. 口科誌 17: 587-593 1968.
- 15) 黒田政文, 宮川慶吾, 他: 舌下部に発生した神経鞘腫の1例. 口科誌 18: 104-107 1969.
- 16) 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.
- 17) 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.
- 18) 北野博也, 北野 仁, 他: 巨大な口腔底神経鞘腫の1例. 耳鼻臨床 76: 2625-2629 1983.
- 19) 長谷川秀行, 白川正順, 他: 口底部に発現した神経鞘腫の1例. 日口外誌 30: 1221-1225 1984.
- 20) 山岸真弓美, 北村 豊, 他: 口底に発生した神経鞘腫の1症例ならびに文献的考察. 日口外誌 33: 1977-1984 1987.
- 21) 和田好弘, 佐藤大三, 他: 口蓋, 口腔底に発生した神経鞘腫の3例. 耳鼻臨床 80: 591-598 1987.
- 22) 宮崎宏之, 待田順治, 他: 口底部に発生した神経鞘腫. 日口外誌 34: 319-322 1988.
- 23) 高橋利幸, 高橋智子, 他: 口腔領域の神経鞘腫13例の臨床ならびに病理学的検討. 日口外誌 35: 2729-2739 1989.
- 24) 大木孝一, 高崎智彦, 他: 口底部に発生した神経鞘腫例. 耳鼻臨床 85: 1943-1947 1992.
- 25) 中村直喜, 関口 隆, 他: 口底に発生した神経鞘腫の1例. 口腔腫瘍 7: 28-32 1995.
- 26) 西村正彰, 鶴追伸一, 他: 口底部に発症した舌神経由来の神経鞘腫の1例. 口科誌 48: 489-492 1999.
- 27) 平田 功, 吉田博昭, 他: 舌下・口底部に発現した巨大な神経鞘腫の1例. 日口外誌 12: 167-169 1999.
- 28) 清水俊行, 朝比奈紀彦, 他: 舌・口腔底に発生した神経鞘腫の1症例. 耳喉頭頸 73: 418-419 2001.
- 29) 川合俊弘, 佐藤鶴子, 他: 口底部に神経鞘腫と唾石症が併発していた1症例. 歯学 88: 328-331 2000.
- 30) 喜多孝志, 佐藤 圭, 他: 軟口蓋・咽頭に発現した巨大な神経鞘腫の1例. 口科誌 37: 345-350 1988.
- 31) 樋田謙二郎, 原 巖, 他: 側頭下窩より上顎臼歯歯肉頬移行部に発現した巨大な神経鞘腫の1例. 日口外誌 38: 1019-1020 1992.
- 32) 岸本麻子, 稲村達哉, 他: 舌神経由来の Neurinoma の1例. 耳鼻臨床 44: 8-11 1998.
- 33) 鈴木将之, 木下靖朗, 他: 下歯槽神経由来の神経鞘腫の1例. 日口外誌 47: 28-30 2001.