下歯槽神経に近接し神経症状がなく経過した 下顎骨中心性神経鞘腫の1例

江口 友美・竹田 宗弘*・中島 昌宗
久島 潔・占部 一彦・古郷 幹彦

A case of neurilemmoma located in the center of the mandible with no neurologic symptoms near the inferior alveolar nerve

EGUCHI Yumi・TAKEDA Munehiro*・NAKASHIMA Masahiro
KUSHIMA Kiyoshi・URABE Kazuhiko・KOGO Mikihiro

Abstract: We report a rare neurilemmoma arising in the center of the mandible with no neurologic symptoms near the inferior alveolar nerve. The patient was a 60-year-old man with mobility of the right mandibular molars. Orthopantomographic and computed tomographic examinations showed a well demarcated wide area of radiolucency, which included the resorbed roots of the mandibular right premolars and molars. We excised the region including the teeth; however, the lesion was not in contact with the inferior alveolar nerve or extraction socket. A microscopic examination revealed an Antoni type A neurilemmoma. No symptoms of sensory disturbance occurred postoperatively. After more than 2 years, there has been no tumor recurrence, and the prognosis remains very good.

Key words: neurilemmoma (神経鞘腫), mandible (下顎骨), central type (中心性), inferior alveolar nerve (下歯槽神経)

緒 言

神経鞘腫はSchwann細胞に由来し、軟組織に発生する良性腫瘍で、頭頸部領域に多く認められる。特に頸部、頬部、頬骨部、側頭下窩に発生する¹⁾。口腔領域での発生は比較的まれで、全体の0.02%と報告されており²⁾、口腔領域では多くが舌に発生している³⁾。その他、口蓋、頬粘膜、口底、歯肉などにみられ、本腫瘍が骨内に発生することはきわめてまれであり、発生した症例報告でも下歯槽神経との関連性を認め、下歯槽神経由来と考えられる場合が少なくなく^{4, 5)}、神経管が顎骨内に走行する同骨の解剖学的特徴を表している。今回われわれは、顎骨中心性に生じ、下歯槽神経症状がなく経過した神経鞘腫の1例を経験したので、その臨床症状、手術法および文献的検討を行ったので報告する。

症 例

患 者：60歳、男性。

主 訴：右側下顎臼歯部歯牙動揺。

現病歴：約1年前より右側下顎に咬合時の違和感、右側下顎臼歯の動揺に気付き、近歯科医院を受診。オルソパントモ写真にて右側下顎骨体部の透過性病変を指摘され、当科に1999年12月■日紹介初診となった。

既往歴、家族歴：特記すべき事項なし。

全身所見：体格は中等度で、栄養状態は良好であった。

口腔外所見：顔貌はわずかに右側膨隆を認め、下歯槽神経支配領域の神経症状は認めなかった。

口腔内所見：「7 6 5」の動揺を認めた。同部歯肉に腫脹はなく、表面粘膜は正常で、歯軸傾斜は認められなかった。また同部の神経症状は認められなかった(写真1)。

画像所見：オルソパントモ写真では右側下顎臼歯部から右側下顎骨体部にかけて、類円形の境界明瞭な二胞性の透過像を認め、「7 6 5」の歯根吸収が認められた。病巣付近での下顎管の走行、オトガイ孔の位置はX線写真からは明らかにできなかった(写真2a)。

頭部正面X線写真では、右側下顎臼歯部の頬側骨に膨隆を認めた(写真3)。

CT像で近心頬側部と遠心部の二胞に分かれた低densityの充実性病変を示しており、皮質骨は菲薄化していた。

大阪大学大学院歯学研究科顎口腔病因病態制御学講座(口腔外科学第1教室)

(主任：古郷幹彦教授)

*大阪労災病院歯科口腔外科

(主任：吉岡秀郎部長)

Division of Pathogenesis and Control of Oral Diseases, Graduate School of Dentistry, Osaka University (Chief: Prof. KOGO Mikihiro)

*Department of Dentistry and Oral Surgery, Osaka Rosai Hospital (Chief: YOSHIOKA Hideo)

受付日：2002年2月4日

採択日：2003年3月18日

写真1 口腔内写真

歯肉腫脹はなく、表面粘膜は正常で、歯軸傾斜はなかった。

写真2 オルソパントモ X 線写真

- a: 初診時 右側下顎臼歯部から下顎体部にかけて、広範囲な二胞性の類円形の境界明瞭な透過像を認め、同歯牙の歯根吸収を認めた。
b: 術後2週
c: 術後6か月 腫瘍切除部に X 線不透過像の増加がみられ、再発はなかった。

写真3 頭部正面 X 線写真

初診時、右側下顎臼歯部の頬側骨に膨隆を認めていた。

写真4 CT 像 (初診時)

近心頬側部と遠心部の二胞に分かれた低 density の充実性病変を認め、皮質骨の破壊は認めなかった。

図1 摘出物シェーマ

腫瘍はゼラチン状の淡黄色、桑実大の充実性実質を多数認め、下方には扁平なものもあった。一部骨と軽度癒着していた (①)。画像所見に一致する二胞性境界部分で不完全な骨吸収を認めた (②)。下歯槽神経は摘出窩内には認められず、抜歯窩とも一層隔離していた。

が破壊は認められなかった (写真4)。

臨床診断: 下顎骨良性腫瘍。

処置および経過: 術前の生検は行わず、2000年1月■日全身麻酔下に口腔内から腫瘍摘出術を施行した。右側下顎犬歯部から智歯相当部まで切開を加え、粘膜骨膜弁を作製した。皮質骨表面は肉眼的には異常は認められなかったが、腫瘍に近接した部分は菲薄化を呈していた。「7 6 5」を抜歯し、抜歯窩底、歯槽中隔およびその頬舌側皮質骨をラウンドバーにて一層削除したところ、薄い結合織性被膜に覆われた腫瘍が露出した。病巣はゼラチン状で弾性硬の淡黄色、桑実大の充実性であり、これらを10数個認めた。多くは大豆形であったが下方には、扁平なものもあった (図1)。これらの腫瘍塊の間隙には、すう疎な線維性組織が認められた。腫瘍塊の近心壁、遠心壁 (図1-①) に、ごく軽度癒着を認めたが、剥離は容易であった。下歯槽神経、動静脈は摘出欠損腔内には認められなかった。画像所見に一致する二胞の境界部分の骨は、上端と下端 (図1-②) に不完全な吸収像 (小突起状) が認められた。骨吸収は「5」部では舌側にまで広がっていた。腫瘍の近遠心壁部分 (図1-①) の骨表面をラウンドバーで一層削除し、創部を完全縫合閉鎖して手術を終了した。

術直後より、右側オトガイ神経支配領域の神経症状は全く認められなかった。

創部の治療経過は良好であり、術後6か月において X 線不透過性の増加が認められた (写真2 bc)。初診時より3年3か月経った現在まで再発を認めておらず、欠損部は義歯補綴により咬合の改善がなされている。今後も定期的に画像検査などを用いた経過観察を行う予定である。

病理組織所見: 腫瘍細胞の核は、ヘマトキシリンに濃染され、紡錘形や楕円形を示し、細胞質はエオジン濃染の細長い形を呈していた。束状ないし渦巻状に観兵式配列をなしていた。その神経線維腫瘍内には、少量のメラニン細胞が散見された。また、免疫組織学所見では、S-100 蛋白陽性、Fontana-Masson 染色陽性、SMA 陰性であった (写真5)。多胞性の腫瘍塊10数個はい

写真5 病理組織像

- a : H-E 染色 密な紡錘形細胞束が観兵式様排列を示していた (Antoni-A 型).
 b : S-100蛋白 腫瘍細胞は陽性を呈していた.
 c : Fontana-Masson 染色 腫瘍細胞は陽性を呈していた.
 d : SMA 腫瘍細胞は陰性を呈していた.

ずれも同様の所見であった。腫瘍塊の間隙では線維性結合組織がごく少量認められた。

病理組織学的診断：神経鞘腫 (Antoni-A 型)。

考 察

神経鞘腫は、神経鞘中の Schwann 細胞由来の良性腫瘍であり、頭頸部に好発するとされているが、口腔内に発生することはまれである。そのなかでも多くは舌に発生し、口蓋、口底などの軟組織に発生することが報告されている。当科における神経鞘腫症例は1986年～2002年の17年間に9例と少なく、まれな疾患と考えられ、本報告例を除き、いずれも舌、頬部、頸部などの軟組織内に局在していた。顎骨内に発生することはきわめてまれではあるが、主に下顎骨内に発生することが知られている。下顎骨では下顎体部に好発し、ほとんどの症例では下歯槽神経束との関連性が示唆されている⁶⁾。近年、下歯槽神経由来と考えられる下顎骨中心性に発生した症例が報告されており、腫瘍が下歯槽神経血管束を下方に圧排し、同症例では一部癒着していたという所見が示されている⁵⁾。現在まで、本邦で報告された下顎骨に発症した神経鞘腫は、われわれの狩猟しえた限りでは本報告例を含め30例^{7～17)}で、これらをまとめて以下の項目について検討した (表1)。

発現年齢：5歳から64歳の範囲で平均年齢は38.1歳であった。平均年齢が他の軟組織腫瘍に比べやや高い傾向が

ある。これは本腫瘍が自覚症状なく経過し、歯科治療時 (オルソパントモ写真撮影) に偶然見つけられることが多いため、発見が遅れることが1つの要因となると推測される。

性別：男性：女性は1：2と女性に多く、これまでの報告⁷⁾と同様の結果であった。

部位：すべての症例において小白歯あるいは臼歯部に局限しており、下顎枝、下顎骨体にまで及ぶ広範囲なものは自験例を含め8例であった。

X線所見：単胞性が多胞性に比べてやや多く認められたが、病巣の範囲が大きい症例に多胞性が高頻度に認められた。

下歯槽神経との位置関係：X線所見では自験例を含め、すべて下歯槽神経と近接または連続してみられたが、術中所見の、記載のある症例では18例中1例を除くすべてが同神経と連続、癒着、あるいは相接していることが確認された。神経と不連続な症例では透過像内に埋伏歯を認めていた。

神経の処理：下歯槽神経を含めた切除、神経の切断がなされていた症例が多かった。これは、腫瘍の由来を考慮し根絶的に除去する目的で行われたと考えられる。

腫瘍切除法：腫瘍が大きく区域切除や下顎骨半側切除を行った症例は7例であるが、範囲の局限した単胞性の症例では一塊切除、あるいはさらなる骨搔爬を行っていることが多い。

腸骨移植：近年、自家腸骨移植による再建を用いる症例が増加しており、7例^{5, 11, 15, 16)}が行っていた。

神経症状：術後の神経症状については、知覚麻痺や知覚異常などを認めたものが多くみられ、主訴が疼痛の症例においては術前より神経症状の存在する可能性があった。

回復の時期：神経症状が術直後に回復する症例が2例あったが、その他は長期間の知覚麻痺をもたらしており、凍結療法や神経被覆保護材を用いた神経保護の工夫もなされつつある。

本報告例は、発症年齢が60歳と高く、発生部位が下顎骨に局限し、無症状で長期間経過していたことが推測される。また、発生部位については好発部位である臼歯部であり、範囲は30症例中でも大きな群に属していた。X線所見では、多胞性で、歯根吸収を伴い、周囲骨との境界が明瞭な症例であった。下歯槽神経との関係について、腫瘍の近心壁と遠心壁にごく軽度の癒着を認めていたが、腫瘍の増大に伴う内側からの圧力によるものとも考えられ、この部分が下歯槽神経の一部であったと断定できるほどの癒着ではなかった。実際、下底や外壁に沿う部分の腫瘍は平坦なものが多かった。また、摘出欠損腔内に神経枝や血管束は全く認められず、下歯槽神経との連続性を認めなかった。この腫瘍の栄養血管については、骨髓、骨からの連絡のみしか存在しなかったのではないかと考えられる。神経と非連続であったものは自験例と杉村の報告の2例のみで、きわめてまれなものであった。したがって、神経切断や神経を含めた切除を行う必要性はなかった。腫瘍切除法について、自験例は多胞性であり、一塊切除は行うことができなかった。手術による神経症状の発生を回避するため、広範囲で

表1 本邦における下顎骨中心性神経鞘腫例

	発表者	発表年	年齢	性別	部位	X線所見	神経*との関係	神経の処理	腫瘍切除法	腸骨移植	神経症状	回復時期
1	小野村	1959	12	F	1+6	単胞性, 根吸収, 埋伏歯						
2	杉村	1971	11	M	3+5	多胞性, 埋伏歯	不連続		一塊切除		知覚麻痺	
3	志村	1973	44	F	下顎枝~6		連続		一塊切除		知覚麻痺	直後
4	田村	1975	19	M	7~4	単胞性	連続		摘出	○	知覚麻痺	4週後
5	木下	1976	51	F	3~6	多胞性			区域切除		知覚麻痺	残存
6	井出	1979	50	F	7~5	単胞性	連続		分割切除		知覚麻痺	4週後
7	属内	1980	19	F	4 5	単胞性			一塊切除		主訴: 疼痛	
8	吉岡	1980	64	M	5 4	単胞性	連続		摘出		知覚異常	残存
9	白本	1981	13	F	3~7	多胞性, 根吸収	連続	神経切断	分割切除		知覚麻痺	3週後
10	宮原	1981	25	M	6+3	単胞性	含有	神経切断	一塊切除		主訴: 疼痛	
11	三原	1982	5	F	6	単胞性, 根吸収	連続	神経を含め切除	一塊切除		知覚麻痺	8週後
12	北原	1984	32	F	1+6	単胞性			摘出		主訴: 疼痛	
13	山本	1984	52	F	6~8	単胞性, 根吸収			開窓		知覚麻痺	残存
14	清水	1985	59	M	8~下顎枝	単胞性	相接	神経圧排後摘出	一塊切除		知覚麻痺	残存
15	河野	1985	22	F	7~1	単胞性, 根吸収			区域切除	○	主訴: 疼痛	
16	平木	1985	36	F	下顎枝~6	単胞性, 根吸収	連続	神経切断	摘出		知覚麻痺	残存
17	馬橋	1986	42	F	左下顎枝	多胞性			区域切除	○	主訴: 疼痛	
18	柳	1988	53	F	下顎骨体~5		癒着	神経を含め切除	摘出		知覚麻痺	残存
19	渋谷	1991	35	M	6+3	根吸収, 埋伏歯	連続	オトガイ孔を含め切除	一塊切除		知覚麻痺	残存
20	山口	1991	33	F	7~4		相接		区域切除		知覚麻痺	
21	上村	1992	48	M	4~8			神経を含め切除	区域切除	○	知覚麻痺	直後
22	大井	1992	56	F	右臼歯部	単胞性	癒着	神経切断	一塊切除		知覚麻痺	
23	白木	1992	72	F	下顎枝~臼歯	多胞性		神経を含め切除	摘出		知覚麻痺	
24	武藤	1993	42	F	下顎枝	多胞性						
25	鶴田	1993	41	F	8 7				顎骨半切	○		
26	多々見	1999	33	M	4+4	単胞性			区域切除	○		
27	宮手	2000	19	F	6~3	多胞性, 根離開	癒着	神経切断	摘出	○	知覚麻痺	
28	村	2000	57	F	臼歯部		連続		摘出			
29	鈴木	2001	39	M	下顎枝~臼歯	単胞性	連続	神経切断	摘出		知覚麻痺	残存
30	自験例	2002	60	M	下顎骨体~4	多胞性, 根吸収	不連続	無処置	分割切除		麻痺なし	

*: 下歯槽神経

あったが区域切除は行わず, 手術侵襲が大きくなることを回避するため腸骨移植は行わなかった。また, 術前術後とも神経症状が全くない症例は記載の限りでは自験例のみであり, 下歯槽神経との関連性が少ないものであると推察された。

本腫瘍の由来神経については, 術中所見で下歯槽神経本幹とは全く無関係であったこと, 術後神経症状がないことから, 下歯槽神経の臼歯部分枝か, あるいは歯髄であった可能性があるが, 抜歯窩と腫瘍の交通も認めておらず, 断定はできなかった。したがって腫瘍の由来についての詳細は明らかにできなかった。

本腫瘍は一般に表面が比較的平滑で周囲組織からの剥離も容易であり, 十分な搔爬または摘出が可能であり, 再発は比較的少ないと考えられている¹⁸⁾。本症例では, 多胞性で骨の近心壁, 遠心壁にごく軽度の癒着を認めたことより, 再発, 腫瘍の残存を避けるため, 癒着部分の骨を一層削除した。また, 顎骨中心性のものは症例数が少なく, まれに悪性の報告もあるので, 今後十分な経過観察を行っていく予定である。

引用文献

- 1) 宮崎 正: 口腔外科学. 松矢篤三, 白砂兼光編; 第2版, 医歯薬出版, 東京, 2000, 258頁.
- 2) Rossi, G.B. and De Sanctis, A.: Sui Neurilemmomi del cavo orale. Riv Anat Pat Oncol 22: 1047-1071 1961.
- 3) 石井純一, 神谷貴充, 他: 口腔顎顔面領域の神経鞘腫. 日口外誌 47: 89-92 2001.
- 4) 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 2000.

- 5) 宮手浩樹, 濤岡一司, 他: 下顎骨中心性に生じた神経鞘腫の1例. 日口外誌 46: 292-294 2000.
- 6) Ellis, G.L., Abrams, A.M., et al.: Interosseous benign neural sheath neoplasms of the jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 44: 731-743 1977.
- 7) 平木紳一郎, 仁木 寛, 他: 下顎骨中心性に発生した神経鞘腫の1例. 日口外誌 33: 187-192 1987.
- 8) 柳 文秀, 堀越 勝, 他: 下顎骨中心性神経鞘腫の1症例. 日口外誌 34: 704-708 1988.
- 9) 渋谷佳伸, 星名秀行, 他: 下顎骨中心性神経鞘腫の1例. 日口外誌 37: 152-155 1991.
- 10) 山口真吾, 角田左武郎, 他: 下顎骨中心性に発生した神経鞘腫の1例(抄). 口科誌 40: 1150 1991.
- 11) 上村俊介, 金川昭啓, 他: 下顎骨中心性神経鞘腫の1例(抄). 日口外誌 38: 1483 1992.
- 12) 大井正道, 木下文夫: 嚢胞状を呈した下顎骨中心性神経鞘腫の1例(抄). 日口外誌 38: 1692 1992.
- 13) 白木雅之, 野口 誠, 他: 下顎骨中心性に発生した神経鞘腫の1例(抄). 日口外誌 38: 174 1992.
- 14) 武藤寿孝, 佐々木泰裕, 他: 下顎骨中心性神経鞘腫の1例とその電子顕微鏡的観察. 口科誌 42: 385-390 1993.
- 15) 鴨田保彦, 今城孝憲, 他: 下顎骨中心性に発生した神経鞘腫の1例(抄). 口科誌 42: 630 1993.
- 16) 多々見敏章, 久保諒修, 他: 下顎骨中心性に発生した富細胞型神経鞘腫の1例. 日口外誌 45: 509-511 1999.
- 17) 中村征一郎, 鹿野 学, 他: 下顎骨中心性神経鞘腫の1例(抄). 日口外誌 46: 818 2000.
- 18) Shafer, W.G.: A textbook of oral pathology. 4th Ed, W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1983, p208-210.