大口蓋神経由来と思われた巨大な神経鞘腫の一例

北野尚孝・深澤壽法・中村佳世子
吉田美昭・植木輝一

A case of a huge neurilemoma considered to arise from the greater palatine nerve

KITANO Hisataka · FUKAZAWA Toshimichi · NAKAMURA Kayoko
YOSHIDA Minori · UEKI Terukazu

Abstract: Neurilemoma is an uncommon benign tumor of the oral and maxillofacial region. We report a huge neurilemoma, measuring 40 × 35 mm, in the palate of a 22-year-old man. The lesion was surgically excised with the patient under general anesthesia. The tumor was confirmed to communicate with the greater palatine nerve at surgery. Histopathologically, it was diagnosed as a neurilemoma, Antoni A and B type. There has been no recurrence during postoperative follow-up of 36 months.

Key words: neurilemoma (神経鞘腫), greater palatine nerve (大口蓋神経), huge (巨大)

緒 言

神経鞘腫は神経鞘の schwann 細胞や神経周膜の線維芽細胞に由来すると考えられる良性腫瘍で、その多くは四肢または頭頸部の皮下に発生する。特に頭頸部においては、頬部および側頭窩下に多く発生し、口腔領域で生じるとは比較的まれであり全体の 0.02 % と報告されている^{1, 2)}。また、口腔領域では多くが舌に発生し、まれに頬粘膜、口底、歯肉および口蓋に生じると報告されている^{3, 4)}。今回、われわれは大口蓋神経由来と考えられる巨大な神経鞘腫の一例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者: 22 歳, 男性。

初 診: 2003 年 10 月 15 日。

主 訴: 硬口蓋の腫瘍。

既往歴および家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 10 年前より硬口蓋に腫瘍の存在を自覚していたが放置していた。2003 年 10 月初旬、近歯科を受診した

際、硬口蓋の腫瘍を指摘され精査目的にて当科を紹介受診した。

口腔外所見: 体格は中等度、栄養状態は良好で全身的に異常は認めなかった。

口腔内所見: 左側硬口蓋にわたる右側硬口蓋を起始部とした 40 × 35mm の広基性で表面不規則な弾性硬の腫瘍が存在した。また腫瘍の一部に潰瘍形成を認め軽度の構音障害を伴っていた (写真 1)。

MRI 所見: MRI 検査では右側小臼歯部硬口蓋から軟口蓋にかけて境界明瞭な腫瘍を認めた。病巣は T1 強調像で筋肉と等信号を、T2 強調像で筋肉より淡い高信号を示した。また、Gd-DTPA において病巣部に造影効果を認めた (写真 2)。

処置および経過: 初診時に腫瘍の試験切除を施行し病理組織学的検査を行った結果、神経鞘腫と診断された。2003 年 11 月 27 日全身麻酔下にて腫瘍切除術を施行した (写真 3)。切除時、上顎骨は温存し腫瘍は骨膜を含め切除した。その際肉眼的に腫瘍と大口蓋神経血管束との連続性が認められたため、大口蓋神経血管束を結紮し切断した。また、上顎骨の骨吸収や基質的变化は認められなかったため、上顎骨に対する処置は行わなかった。腫瘍切除後の粘膜欠損部に人工コラーゲン膜を貼付し、口蓋床にて創部を保護した。術直後、右側大口蓋神経支配領域の知覚欠如を認めた。また初診時より認めていた構音障害は消失した。以後 3 年

日本大学医学部歯科口腔外科学教室
(主任: 植木輝一助教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Medicine, Nihon University (Chief: Associate Prof. UEKI Terukazu)

受付日: 2007 年 1 月 19 日

採択日: 2007 年 12 月 25 日

写真1 初診時口腔内写真

右側硬口蓋から左側硬口蓋にかけて 40×35 mm の広基性で弾性硬の腫瘍を認めた。また腫瘍の一部に潰瘍を認めた (矢印)。

以上経過した現在、右側大口蓋神経支配領域の知覚欠如を認めるも構音障害および再発傾向はなく経過良好である。

摘出標本所見：摘出標本は $40 \times 35 \times 18$ mm で、表面を薄い線維性皮膜で覆われた腫瘍であった (写真4)。

病理組織学的所見：口蓋粘膜下に周囲を線維性被膜で囲まれた腫瘍が認められた。また、腫瘍細胞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束状および渦巻状構造を呈し、無構造な基質をはさんで核が規則正しく並び柵状配列いわゆる観兵様配列が認められた。また粘膜腫瘍様間質のなかに腫瘍細胞が粗に配列し、細線維が乏しく不規則な走向をする部分も認められ典型的な Antoni A 型と Antoni B 型の混在型であった (写真5)。

矢状断

T1 強調像

T2 強調像

Gd-DTPA

水平断

T2 強調像

Gd-DTPA

写真2 初診時 MRI 像

T1 : TR ; 590, TE ; 15 T2 : TR ; 3450, TE ; 120 Gd-DTPA : TR ; 590, TE ; 15

MRI 造影検査では両側小臼歯部硬口蓋から軟口蓋にかけて境界明瞭な腫瘍を認めた。また内部に不均一な造影効果を認めた。

写真3 術中写真

硬口蓋に骨の陥没を認め、肉眼的に腫瘍と大口蓋神経血管束との連続性が認められた。

写真4 摘出標本写真

摘出標本は数個の小塊から成っており、黄白色を呈しており弾性硬であった。摘出標本の上方は被膜がはがされ腫瘍実質が明示されており、下方は線維性被膜で覆われている。

写真5 病理組織像 (H-E 染色)

A : 弱拡大

口蓋粘膜下に境界明瞭な充実性結節性腫瘍が認められた。

B : 中拡大, C : 強拡大 (Antoni A 型), D : 強拡大 (Antoni B 型)

紡錘形ないし楕円形の核を有する細胞が束状に増殖し、核が規則正しく並ぶ観兵様配列を呈する Antoni A 型の部分が大半を占めていたが、一部に粘液腫様間質を示す Antoni B 型の像が認められた。

表1 本邦における口蓋に発生した神経鞘腫の報告例

症例 No.	発 表 者	発表年	年齢	性別	大きさ (mm)	発生部位	Antoni 分類
1	井出 守義 ⁵⁾	1941	51	男	不明	軟口蓋	不明
2	奥田儀一郎 ⁶⁾	1957	36	女	50×35×27	軟口蓋	不明
3	小出 隆康	1962	22	女	15×7	硬口蓋	A型
4	福岡 公介 ⁷⁾	1962	29	女	15×20×5	硬口蓋	不明
5	松丸 秀明	1964	24	男	35×25×20	軟口蓋	A型
6	石井 英夫 ⁸⁾	1968	19	女	20×15×15	軟口蓋	A型
7	滝川 富雄 ⁹⁾	1970	4	男	拇指頭大	硬口蓋	A型
8	松田 登 ¹⁰⁾	1976	20	女	小指頭大	硬口蓋	A型
9	阿部 節子	1976	15	女	20×26	硬口蓋	A型
10	宮 和貴夫	1981	27	男	15×10×10	軟口蓋	A型
11	小河原利影	1982	79	女	不明	硬口蓋	A・B混在型
12	山下 尚之 ¹¹⁾	1985	19	女	20×15×10	軟口蓋	A型
13	高野 信夫	1986	24	女	20×20×20	硬口蓋	A型
14	和田 好弘	1986	50	男	不明	硬口蓋	不明
15	若松 常信 ¹²⁾	1986	12	男	40×30×25	硬口蓋	A型
16	北村 晃 ¹³⁾	1987	12	男	5×8	硬口蓋	A・B混在型
17	長野 紀也	1987	12	女	24×28	硬口蓋	A型
18	亀山 嘉光 ¹⁴⁾	1988	13	男	15×10	軟口蓋	A型
19	喜多 孝志 ¹⁵⁾	1988	73	女	35×30×30	軟口蓋	不明
20	大森 昭輝 ¹⁶⁾	1989	51	女	不明	硬口蓋	不明
21	佐々木 勲 ¹⁷⁾	1989	25	女	25×23×16	硬口蓋	A型
22	村岡 斉	1990	19	女	27×18	硬口蓋	A・B混在型
23	上園 善子 ¹⁸⁾	1990	16	男	23×30×7	硬口蓋	A・B混在型
24	伊藤 千鶴	1992	15	男	不明	硬口蓋	A・B混在型
25	林 浩幸	1993	12	男	7×6×2	硬・軟口蓋	A型
26	中村 康典	1995	55	女	30×20	口 蓋	不明
27	山田 容三 ¹⁹⁾	1995	21	女	10×4.5×3.5	硬口蓋	A型
28	久我むつみ	1996	51	男	25×20×18	軟口蓋	A・B混在型
29	中尾 治郎	1996	26	男	拇指頭大	硬・軟口蓋	A型
30	植田 直人	1997	53	女	20×12×14	硬口蓋	A型
31	若江 秀敏	1997	44	男	不明	口 蓋	不明
32	岸田 剛	1998	66	女	15×10×10	口蓋部歯肉	A型
33	露木 基勝 ²⁰⁾	1998	20	女	20×15	軟口蓋	A・B混在型
34	樋口 義高	1998	14	男	直径20	硬口蓋	A・B混在型
35	児玉 泰光	1999	49	女	17×14×7	硬口蓋	不明
36	香取 幸夫 ²¹⁾	1999	35	男	15×15×15	軟口蓋	不明
37	田口 雄一	1999	45	女	10×12	硬口蓋	A型
38	水野健太郎	2000	30	男	14×12	硬口蓋	A型
39	全 一 ²²⁾	2000	23	女	25×25×30	軟口蓋	A型
40	岸本 潤	2004	11	女	23×20×25	軟口蓋	不明
41	本症例	2007	22	男	40×35×18	硬口蓋	A・B混在型

病理組織学的診断：神経鞘腫 (neurilemoma)。

考 察

神経鞘腫は顎口腔領域において口蓋での発生はまれである⁹⁾。今回われわれが渉猟し得た本邦における口蓋に発生した神経鞘腫は重複報告例を除いて本症例を含めると41例であった(表1)^{5)~22)}。これらについて検討を加えると、

発生年齢は4歳から79歳で平均年齢が30.3歳であった。好発年齢において佐々木ら¹⁷⁾の報告によると、10歳代~20歳代で平均25.6歳と報告している。自験例は22歳であり報告とほぼ類似していた。また性別においては男女比に明らかな性差は認めないとしているが、われわれの検討においては男性18例(43.9%)、女性23例(56.1%)と若干女性に多く発生する傾向が認められた。さらに腫瘍の大きさにおいては、10~30mm大のものが圧倒的に多く40mmを超える腫瘍はわずかに3例(7.3%)であった。本腫瘍の大きさは山崎ら²³⁾によると、腫瘍の発生部位により大きさが異なり顎下部や口底部に発生する腫瘍は大きく、その他の部位では20~30mm前後であると報告されている。今回の検討においても山崎ら²³⁾の報告に類似していたが、自験例の摘出検体は40×35×18mmと口蓋に発生した神経鞘腫のなかでは極めて大きな腫瘍であった。これは学童期より口蓋部の膨隆を自覚していたがその時点から10数年放置していたことが第一の原因として考えられた。その結果、口蓋に発生した神経鞘腫においては極めて大きな腫瘍に発育したものと思われた。また初診時、腫瘍表面に潰瘍形成をきたしていたのは食事

時の食塊の接触や嚥下の際に舌が腫瘍に触れ嚥下圧が加わり腫瘍表面が自壊し潰瘍形成をおこしたのではないかと考えられた。さらに発音する際に舌が腫瘍に触れることにより粘膜の脱落をおこしたのではないかと考えられた。また発生部位の検討では、硬口蓋に23例(56.1%)、軟口蓋に13例(31.7%)みられ、硬口蓋にやや多く発生していた。病理組織学的に本腫瘍はAntoni²⁴⁾によりAntoni A型

(束状型) および B 型 (網状型) に分類されており, 今回われわれが渉猟した症例においても不明なものを除くと, 口蓋に発生した神経鞘腫においては Antoni A 型が 21 例 (70.0 %), Antoni A 型および B 型の混在型が 9 例 (30.0 %) で Antoni B 型の報告は 1 例もなかった. 顎顔面領域に発生した神経鞘腫において, Antoni A 型が 78/128 例 (61 %), Antoni B 型が 6/128 例 (5 %), Antoni A 型および B 型の混在型が 44/128 例 (34 %) であったという黒川ら²⁵⁾の報告がある. また, Moualli ら²⁶⁾は脊髄神経領域において Antoni B 型の神経鞘腫を報告している. したがって, 口蓋領域において Antoni B 型の神経鞘腫はないか, あっても非常にまれであり, そのことは口蓋に発生する神経鞘腫の臨床統計学的な特徴ではないかと考えられた.

神経鞘腫の根治的治療は外科的手術による腫瘍切除が行われ, 術後の神経脱落症状が問題になることが多々認められる. 本症例では腫瘍が大口蓋神経と肉眼的に癒着しており術後の右側口蓋部知覚異常が認められた. また術後に機能障害が残る可能性のある組織と癒着がある場合はその一部を残存することもやむをえないとされているが, 腫瘍の再発の可能性はかなり高くなるものと考えられる. また本腫瘍が再発し悪性化したとの Kun ら²⁷⁾の報告もあることから, 十分な経過観察が必要である.

結 語

今回われわれは硬口蓋に発生した大口蓋神経由来と考えられる巨大な神経鞘腫の一例を経験したので報告した.

本論文の要旨は第 50 回日本口腔外科学会総会 (平成 17 年 10 月, 大阪) において発表した.

引 用 文 献

- 宮崎 正: 口腔外科学. 松矢篤三, 白砂兼光; 第 2 版, 医歯薬出版, 東京, 258 頁 2000.
- Rossi, G.B. and De Sanctis, A.: Sui Neurilemmomi del cavo orale. Riv Anat Pat Oncol 22: 1047-1071 1961.
- 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.
- 江口友美, 竹田宗弘, 他: 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. 日口外誌 49: 397-400 2003.
- 井出守義: 軟口蓋に発生セル「ノイリノーム」ノ一例. 大日耳鼻会報 47: 745-747 1941.
- 奥田儀一郎: 軟口蓋に発現せるノイリノームの 1 症例. 耳喉 29: 929-931 1957.
- 福岡公介, 野々村徹也, 他: 硬口蓋に発生した Neurinoma の 1 例. 口科誌 11: 196-199 1962.
- 石井 英夫, 川端 五十鈴, 他: 神経鞘腫 (Neurilemoma) の電子顕微鏡像について. 耳鼻臨床 61: 231-242 1968.
- 滝川富雄, 阿部正彦, 他: 小児の口蓋に生じた神経鞘腫の 1 例. 日大歯学 44: 9-14 1970.
- 松田 登, 四方一泉, 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.
- 山下尚之, 亀山忠光, 他: 軟口蓋にみられた神経鞘腫の 1 例. 日口外誌 31: 2467-2470 1985.
- 若松常信, 向井 洋, 他: 上顎に発生した Schwannoma の 1 例. 日口外誌 32: 479-482 1986.
- 北村 晃, 井口次夫, 他: 硬口蓋に見られた神経鞘腫の 1 例. 日口外誌 33: 428-431 1987.
- 亀山嘉光, 榊 祥宏, 他: 軟口蓋に発生した神経鞘腫の 1 例. 日口外誌 34: 1994-1999 1988.
- 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.
- 大森昭輝, 武 宜, 他: 口蓋部にみられた転移性悪性神経鞘腫の一例. 口腔腫瘍 1: 111-112 1989.
- 佐々木 勲, 佐々木 朗, 他: 口蓋に発生した神経鞘腫の 1 例. 日口外誌 35: 1611-1616 1989.
- 上園善子, 埜口五十雄, 他: 口蓋に発生した神経鞘腫の 1 例 (抄). 日口外誌 36: 1118-1119 1990.
- 山田容三, 工藤泰一, 他: 硬口蓋に発生した神経鞘腫の 1 例. 東医大誌 53: 250-252 1995.
- 露木基勝, 山本一彦, 他: 軟口蓋に発生した神経鞘腫の 1 例. 日口診誌 11: 123-127 1998.
- 香取幸夫, 菊池俊彦, 他: 軟口蓋に発生した神経鞘腫の 1 例. 耳喉頭頸 71: 406-407 1999.
- 全 一, 村上匡孝, 他: 軟口蓋神経鞘腫例. 耳鼻臨床 93: 383-388 2000.
- 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.
- Antoni, N.R.E.: Uber Ruckenmarks Tumoren und Neurofibrome. Munchen, Verlag von J.F. Bergmann 1920.
- 黒川英雄, 津留昭二, 他: 神経鞘腫の 5 例. 日口外誌 36: 1764-1775 1990.
- Moualli, B.S., Hajri, M., et al.: Retroperitoneal schwannoma. Case report. Int J Surg Pathol 35: 270-272 2001.
- 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.