頸部迷走神経鞘腫手術症例の検討

嶋 根 俊 和^{1,2,3)} 江 川 峻 哉¹⁾ 櫛 橋 幸 民¹⁾
 池 谷 洋 一^{1,3)} 下 鑪 裕 子³⁾ 中 村 泰 介³⁾
 河 村 陽 二 郎³⁾ 藤 居 直 和³⁾ 北 田 良 裕³⁾
 小 林 齊³⁾

要旨：2005年4月から2014年3月までの間に当科で被膜間摘出術を施行した31例の頸部神経鞘腫のうち、迷走神経由来であった10例を対象とし検討を行った。術後に神経脱落症状を認めた症例は3例であった。2例で喉頭麻痺（嚥声・嚥下障害）が認められ、1例で喉頭麻痺（嚥声・嚥下障害）と咳嗽発作が認められた。喉頭麻痺だけを生じた2例は術前に神経症状を認めておらず、1例は永続性の声帯麻痺、1例は3か月で改善した。喉頭麻痺と咳嗽発作を生じた症例は、喉頭麻痺は3か月で改善したが咳嗽発作は改善しなかった。この症例は、術前から咳嗽発作のみが認められていた。

迷走神経由来の神経鞘腫は、摘出により嚥声、嚥下障害、咳嗽発作などをきたす可能性があり、術後患者のQOLに重大な影響を及ぼすため、手術には十分なインフォームドコンセントと手術経験が必要と考えられる。
キーワード：神経鞘腫、迷走神経、被膜間摘出術

Summary Examination of cervical neurinomas of the vagus nerve:

Toshikazu Shimane^{1,2,3)}, Shunya Egawa¹⁾, Yukiomi Kushihashi¹⁾, Yoichi Ikenoya^{1,3)}, Yuko Shimotatara³⁾, Taisuke Nakamura³⁾, Yojiro Kawamura³⁾, Naokazu Fujii³⁾, Yoshihiro Kitada³⁾ and Sei Kobayashi³⁾. ¹⁾ Showa University Head and Neck Oncology Center, ²⁾ Department of Oral Surgery, Oral Oncology, Showa University School of Dentistry, ³⁾ Department of Otorhinolaryngology, Showa University, Fujigaoka Hospital

Of the patients seen for cervical neurinomas at our department between April 2005 and March 2014, 31 underwent intercapsular resection. Of them, we investigated 10 in whom the condition originated in the vagus nerve. 3 patients showed postoperative neurological deficit. One patient improved within 3 months, but the others did not improve. Hoarseness, dysphagia and coughing attack may be caused in cases by a neurinoma operation in the vagus nerve, which may greatly affect a patient's occupation and quality of life. Before operation, informed consent must be obtained, and relevant surgical experience should be acquired in addition to taking any disadvantages into account.

Key words: neurinoma, vagus nerve, intercapsular resection

[Received Apr. 25, 2014, Accepted Feb. 9, 2015]

はじめに

頸部に発生する腫瘍の中で神経鞘腫は比較的まれ

な腫瘍である。しかし、その中でも迷走神経由来の腫瘍は比較的多く存在する。これまでに迷走神経鞘腫の報告¹⁻⁵⁾は多数存在するが、同一術式、同一術者が明記されている報告は見当たらない。特に迷走神経由来の神経鞘腫は、摘出により嚥声、嚥下障害、咳嗽発作などをきたす可能性があり、術後患者のQOLに重大な影響を及ぼすことがあるため、術

¹⁾ 昭和大学頭頸部腫瘍センター

²⁾ 昭和大学歯学部口腔外科学講座口腔腫瘍外科部門

³⁾ 昭和大学藤が丘病院耳鼻咽喉科

[平成26年4月25日受付、平成27年2月9日受理]

前には十分なインフォームドコンセントと手術経験が必要と考えられる。今回われわれは頸部迷走神経鞘腫に対し、同一術者が被膜間摘出術を行い特に術後の神経脱落症状について検討したので報告する。

対象と方法

2005年4月から2014年3月までの間に昭和大学藤が丘病院耳鼻咽喉科で頸部神経鞘腫に対し、被膜間摘出術を施行した31例のうち迷走神経由来であった10例を対象とした。

検討項目は、年齢、性別、術前の神経症状、腫瘍の大きさ、術後の神経症状とした。また今回の対象症例の手術に関してはすべて同一術者が被膜間摘出術を行っている。

また症例1～5は文献6)で報告済みであるが、今回症例が10例と蓄積したためまとめて追加報告する。

結 果

今回の検討期間内での迷走神経由来の神経鞘腫の割合は31例中10例(32.3%)であり最多であった。

症例一覧を表1に示す。

1) 年齢・性別

年齢は、21～64歳で平均41.6歳であった。

性別は、男性4例、女性6例であった。

2) 術前の神経症状(腫瘍の圧迫なしでの症状)

術前に神経症状を呈していた症例は1例で咳嗽発作を認めた。9例は無症状であった。また腫瘍の圧迫で咳嗽発作を生じた症例は認めなかった。

3) 腫瘍の大きさ

摘出標本の最大径は、24～76mmであり平均45.7mmであった。

4) 術後の神経症状

術後に神経脱落症状を認めた症例は3例であった。2例で喉頭麻痺(嚥声・嚥下障害)が認められ、1例で喉頭麻痺(嚥声・嚥下障害)と咳嗽発作が認められた。喉頭麻痺だけを生じた2例は術前に神経症状を認めておらず、1例は永続性の声帯麻痺、1例は3か月で改善した。喉頭麻痺と咳嗽発作を生じた症例の喉頭麻痺は3か月で改善したが、咳嗽発作は改善しなかった。この症例は、術前から咳嗽発作のみが認められていた。

他院で経過観察をされていた腫瘍径が最大の症例7を提示する。

症 例

症例：35歳、男性。

主訴：左頸部腫瘍。

現病歴：2011年の健康診断で左頸部の腫瘍を指

表1 症例一覧

	年齢・性別	最大径(mm)	術前症状	術後症状
1	23F	70	なし	永続性麻痺(喉頭麻痺)
2	21M	50	なし	なし
3	40F	24	なし	なし
4	51F	36	なし	一過性麻痺(喉頭)
5	33F	30	なし	なし
6	43F	26	咳嗽発作	永続性麻痺(咳嗽発作) 一過性麻痺(喉頭麻痺)
7	36M	76	なし	なし
8	64F	46	なし	なし
9	51M	37	なし	なし
10	54M	62	なし	なし

摘されていたが、特に症状もないため放置していた。2013年の健康診断で精査を勧められ、近くの大学病院を受診したところ神経鞘腫が疑われ他の大学病院を紹介された。同院で迷走神経、腕神経叢由来の神経鞘腫の疑いと診断され全摘出術を勧められた。術後に嚥声、嚥下障害ないし左上肢の運動障害が出現する可能性が高いことを説明され、年齢の面から3か月ごとのMRIによる経過観察を行っていくこととなった。その後、神経温存手術を希望されセカンドオピニオン目的に当院を受診した。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

初診時所見：左頸部に上下7cmを超える無痛性で弾性硬の腫瘍を認めた。腫瘍の下方は鎖骨下に達しており下端を触知することはできなかった。腫瘍は上下の可動性はなく左右の可動性を認め、圧迫しても疼痛、咳嗽、左腕の知覚、運動障害を認めず、その他の症状の出現も認められなかった。その他、咳嗽発作、嚥声等の症状はなく、神経脱落所見も認めなかった。

頸部MRI所見(図1)：水平断では甲状腺の前外側、総頸動脈の前方に内頸静脈を外側に圧排する境界明瞭な35mm大の腫瘍を認め、T2強調画像で軽度高信号を呈していた。冠状断では80mm×38mmの腫瘍を認め、下端は縦隔に達していた。

穿刺吸引細胞診：細胞成分を認めず判定不能。

臨床経過：迷走神経由来の神経鞘腫を疑い、被膜間摘出術を行うが術後の神経脱落症状が生じる可能性があること、他の神経由来の神経鞘腫の可能性、その他の希少腫瘍の可能性、さらには経過観察のメリット、デメリットをインフォームドコンセントし、

a

b

図 1 頸部 MRI 所見

- a 水平断：甲状腺の前外側，総頸動脈の前方に内頸静脈を外側に圧排する境界明瞭な 35mm 大の腫瘍を認め，T2 強調画像で軽度高信号を呈していた。
b 冠状断：左頸部に 80mm×38mm の腫瘍を認め，下端は縦隔に達していた。

全身麻酔下にて手術を行った。

術中所見（図 2，図 3）：腫瘍の直上を横切開し腫瘍を丁寧に露出した。腫瘍は総頸動脈と内頸静脈の間に存在し，迷走神経との連続性を確認できた。腫瘍上の神経線維の位置を確認し，最も遠い部分の神経上膜に切開を加え被膜間摘出術を開始した。しかし腫瘍の下端は確認できないため，上方から摘出し下端は腫瘍を牽引しながら摘出を行った。術後神経脱落症状は認められなかった。

病理組織学的所見：腫瘍は間質に富んでおり，紡錘形細胞の柵状配列を認め Antoni A と B type の混在した神経鞘腫であった。

考 察

神経鞘腫は Schwann 細胞から発生する腫瘍であり，視神経と嗅神経以外の脳神経，自律神経，末梢神経から発生する⁷⁾。頸部神経鞘腫の由来神経は，迷走神経，腕神経叢，頸神経，交感神経の順に多いと報告⁸⁻¹⁰⁾されており，迷走神経由来の腫瘍は頸部神経鞘腫の中では最も多い。当科の頸部神経鞘腫 31 例の中では迷走神経由来のものは 10 例で最多であり，次いで腕神経叢，頸神経，副神経の順に多く認められた。

迷走神経由来の神経鞘腫に関する報告¹⁻⁵⁾はこれまでに多数存在するが，症例数が少ないため長期間の後ろ向き検討や報告例のまとめで，術者や摘出法が同一か，神経鞘腫と診断して手術を行ったかなどの記載がない報告^{3,4)}が多い。また迷走神経由来の神経鞘腫の報告は頸部神経鞘腫の中では比較的症例数が多いため 1，2 例では報告されていない可能性もあり，実際の術前，術後症状の発生頻度は不明で

ある。そのためわれわれは同一施設において同一術者，術式による迷走神経由来の神経鞘腫の術前，術後症状を検討し報告することとした。

術前症状に関してはこれまでの報告^{3,4,6,9)}通り，無痛性の腫瘍として自覚されることが多く 9 例が術前症状を認めなかった。1 例は咳嗽発作が認められており 10%と頻度は少ないが術前症状が認められる例も存在した。また腫瘍の大きさと術前の神経症状に関係を認めなかった。原口ら⁴⁾は迷走神経鞘腫の報告 86 例をまとめており 89.5%の症例が頸部腫瘍として自覚し，18.6%に圧迫による咳嗽の出現ないし咳嗽発作，反回神経麻痺が 7.0%認められたと報告している。また木田ら³⁾は 65 例の報告をまとめており圧迫による咳嗽発作は 23.0%と報告している。これまでに術前に神経症状があっても手術により改善する可能性があると報告^{6,9,10)}されているが，本検討で術前から咳嗽発作を認めた症例は，術後一過性に症状が悪化しその後術前と同程度となり改善は認められなかった。術後 1 年経過し発作の回数は減少しているが頸部を軽く触ると咳嗽発作が生じている状態である。

術後の神経脱落症状では 3 例が喉頭麻痺（嚥声・嚥下障害）を生じていた。2 例は 3 か月後に自然軽快しているが，1 例は永続性の声帯麻痺を生じている。これまでの報告^{6,9)}では腫瘍径が大きいなど摘出しにくい症例に生じ，手術手技が関係している可能性が指摘されている。今回術後に神経脱落症状を呈した症例について検討してみると，症例 1 は腫瘍径が 70mm と大きく神経上膜から腫瘍を摘出する際に神経自体に負担がかかったこと，著者自身手術経験の少ない初期の症例であり腫瘍被膜より浅い層

図 2 術中所見

a：偏在した神経線維から離れた部位の神経上膜を切開し腫瘍被膜を露出している。
b：頭側の腫瘍を牽引し、縦隔内の腫瘍を剥離し摘出している。

図 3 摘出物

黄色で比較的柔らかな長径76mmの腫瘍であった。
写真左側の細くなった部位は縦隔内に存在した。

で剥離を開始し、腫瘍が摘出できないために再度腫瘍被膜上で剥離を行った点が考えられる。症例4は甲状腺癌の術後の症例で周囲が瘢痕化していたことが原因として考えられ、症例6では腫瘍径は26mmではあるが腫瘍被膜より浅い層で剥離してしまったことと術前から咳嗽発作を認めていた点が考えられた。術中に腫瘍被膜の確認を誤ると腫瘍摘出までに複数回の剥離を繰り返さなければならないことや、本来温存できる神経束が腫瘍側に残存し、神経線維が腫瘍内に入り込んでいると判断して切断してしまう可能性がある。また本検討では永続性の麻痺を生じた症例の最大径は70mm（声帯麻痺）、26mm（咳嗽発作）であり、一過性の麻痺を生じた症例の最大径は36mmであった。手術手技も関係していると考えられるが76mmの症例でも術後の麻痺症状を呈しておらず、神経上膜内での腫瘍の局在も関係し

ていると考えられ今後も術後に神経脱落症状をきたした原因についての検討が必要と考えられた。

手術法に関して1990～2000年前半の報告^{3,4)}では全摘出術が行われている場合が多い。先に引用した原口ら⁴⁾の報告では85例中55例、木田ら³⁾の報告では55例中40例が全摘出術が行われていたとしている。またValentinoら¹¹⁾の頸部神経鞘腫146例の検討でも64%に永続的な麻痺が生じているため神経温存は困難で全摘出術を行い神経移植することをすすめている。当時の報告^{2,10)}では神経温存術式を行ってもほとんどの症例で永続的な神経脱落症状を生じ、特に迷走神経が切断されても嗄声以外に臨床上問題とならないとされている。これらは有用な報告ではあるが、多くの報告を集計したものであり同一術者、術式によるものではなく術者の経験、技術が影響している可能性が高いと考えられる。その後被膜間摘出術が広く知られるようになってからの2000年半ばからは、神経温存術式を行い術後に神経脱落症状をきたさなかった報告^{5,6,9,12-16)}が散見されるようになってきている。手術法に関しては、橋本^{17,18)}が術後の神経機能温存術式として被膜間摘出術を報告し、良好な成績を示している。橋本^{17,18)}によると神経鞘腫はSchwann細胞から発生する腫瘍であり、このSchwann細胞は末梢神経細胞の軸索を取り囲む神経膠細胞で神経細胞の軸索をいくつか束ねたり、軸索の周囲に髄鞘を形成する。有髄線維は神経内膜で包まれ、さらに同様の神経線維が多数集まって神経束を形成し神経周膜に包まれる。同様に神経周膜で包まれた他の神経束や血管、脂肪とともに1本の神経となり、神経上膜におおわれているため腫瘍の周りには神経内膜がある。1本の末梢神経は多くの神経線維からできているので、腫瘍の周

囿には正常な神経線維が多数あり腫瘍とともに神経周膜でおおわれ、さらに他の神経束と一緒に神経上膜に包まれている。被膜間摘出術 (inter-capsular resection) は正常な神経束を極力残しつつ腫瘍を摘出する方法で腫瘍と関係ない神経束がない部位で神経上膜を切開し、さらに腫瘍の存在する神経周膜を切開し真の腫瘍のみを摘出する術式で神経上膜と真の腫瘍被膜の間で摘出するため被膜間摘出術と報告している。本検討でも被膜間摘出術を行うことにより 10 例中 8 例に永続的な神経脱落症状を残すことなく摘出することができ有効な手術術式である。

頸部神経鞘腫の治療は手術であるが、経過観察が行われている場合も多数存在する。症例に応じて年齢、職業、術後の QOL など十分な検討とインフォームドコンセントが必要となってくる。特に迷走神経由来の神経鞘腫では術後に嘔声、嚥下障害、咳嗽発作をきたす可能性があり、職業上問題となる場合や高齢者での嚥下性肺炎の問題も考慮すべきである。また一方で神経鞘腫は年間 3 mm 程度増大する¹⁹⁾こと、増大することで神経麻痺症状が出現する可能性があることや摘出が困難になることで手術後に神経脱落症状が生じやすくなること^{6,9)}も考慮しインフォームドコンセントをしなければならない。特にわれわれは症例 7 を経験し、20 ~ 40 歳代の症例で術後神経脱落症状の可能性があるため手術を行わず、経過観察するのではなく手術、経過観察のメリット、デメリットを十分に時間をかけてインフォームドコンセントを行っていくべきと考えられた。今後、手術を施行する医師、そして手術を受ける患者が、治療について判断するうえで本報告が合併症発生の一つの情報材料となると考えられる。そして症例数を増加させることで各由来神経別での合併症発生率も検討していくべきと考えている。

まとめ

同一術者が被膜間摘出術を行った迷走神経由来の頸部神経鞘腫 10 例について臨床的に検討した。

術後に神経脱落症状を認めた症例は 3 例であった。2 例で喉頭麻痺が認められ、1 例で喉頭麻痺と咳嗽発作が認められた。喉頭麻痺だけを生じた 2 例は術前に神経症状を認めておらず、1 例は永続性麻痺、1 例は 3 か月で改善した。

迷走神経由来の神経鞘腫では、術後に嘔声、嚥下障害、咳嗽発作をきたす可能性があり、患者の年齢、職業、術後の QOLなどを十分に検討し、手術、経過観察のメリット、デメリットを十分に時間をか

けてインフォームドコンセントを行っていくべきである。

著者は申告すべき利益相反を有しない。

文 献

- 1) 小河孝夫, 花満雅一, 小川富美雄, 他: 頸部迷走神経鞘腫の 3 例. 耳鼻臨床, 100 : 467-472, 2007.
- 2) 古川正樹, 山下耕太郎, 金子まどか, 他: 頸部迷走神経より発生した神経鞘腫の 3 例. 日耳鼻, 91 : 1256-1266, 1998.
- 3) 木田亮紀, 藤井まゆみ, 穴澤卯恭, 他: 頸部の迷走神経鞘腫—症例報告と本邦例の集計—. 耳鼻臨床, 83 : 275-286, 1990.
- 4) 原口秀俊, 奥野秀次: 頸部迷走神経鞘腫例. 耳鼻臨床, 89 : 229-235, 1996.
- 5) 馬場 優, 渡部高久, 田代昌継, 他: 機能温存ができた頸部迷走神経鞘腫の 1 例. 耳喉頭頸, 80 : 477-480, 2008.
- 6) 嶋根俊和, 下鐘裕子, 中村泰介, 他: 頸部神経鞘腫手術症例の検討. 頭頸部外科, 23 : 419-423, 2013.
- 7) 渡部洋一, 仲野雅幸, 鈴木恭一, 他: 脊髄副神経鞘腫の 1 手術例. 日本パラプレジア医学雑誌, 3 : 310-311, 1990.
- 8) 平出文久, 西澤伸志: 神経系頸部腫瘍. 耳鼻咽喉頭頸部外科 MOOK, NO.2 (野村恭也, 本庄 巖編), 122-133, 金原出版, 東京, 1986.
- 9) 嶋根俊和, 池田賢一郎, 江川峻哉, 他: 当科における頸部神経鞘腫の検討. 頭頸部外科, 20 : 261-265, 2011.
- 10) 浅井雅幸, 水田啓介, 安藤健一, 他: 上下肢麻痺を摘出術で改善させることができた巨大頸部神経鞘腫例. 耳鼻臨床, 103 : 677-681, 2010.
- 11) Valentino J, Boggess MA, Ellis JL, et al: Expected neurologic outcomes for surgical treatment of cervical neurilemmomas. Laryngoscope 108 : 1009-1013, 1998.
- 12) 嶋根俊和, 徳留卓俊, 下鐘裕子, 他: 頸部に発生した上喉頭神経鞘腫の 1 例. 頭頸外科, 23 : 87-91, 2013.
- 13) 小河原剛, 油井健史, 嶋根俊和, 他: 腕神経叢由来の頸部神経鞘腫の 1 例. 耳展, 48 : 81-85, 2005.
- 14) 門田哲弥, 森 智昭, 嶋根俊和, 他: 頸部副神経鞘腫の 1 例. 耳展, 52 : 91-95, 2009.
- 15) 門田哲弥, 古矢彩子, 嶋根俊和, 他: 頸部舌神経鞘腫の 1 例. 耳展, 51 : 232-236, 2008.
- 16) 松本 秀, 渡辺太志, 佐伯忠彦, 他: 神経機能を温存できた腕神経叢神経鞘腫の 3 例. 耳鼻臨床, 105 : 59-64, 2012.
- 17) 橋本 省: 頭頸部領域の神経鞘腫の取り扱い—頸部神経鞘腫に対する被膜間摘出術のコンセプト—. 頭頸部外科, 17 : 91-92, 2007.
- 18) 橋本 省: 神経鞘腫—頸部神経鞘腫の被膜間摘出術による機能保存. JOHNS, 20 : 591-593, 2004.
- 19) de Araujo CE, Ramos DM, Moyses RA, et al: Neck nerve trunks schwannomas. Laryngoscope 118 : 1579-1582, 2008.