高位に発生した頸部迷走神経鞘腫の 1 例

佐藤 祐介 太田 嘉英 倉林 宏考
佐々木 剛史 伊澤 和三 山崎 浩史

要旨：今回われわれは、頸動脈間隙の高位に発生した頸部迷走神経鞘腫の 1 例を報告する。症例は、71 歳、女性。咽頭部違和感を主訴として来院した。口腔内所見として、左口蓋咽頭弓に約 50×60mm 大、無痛性腫瘤を認めた。腫瘤は、CT および MR にて左頸動脈間隙を占拠していた。また、腫瘤は総頸動脈および内頸静脈を解離させ、頭蓋底まで及んでいた。われわれは、subcutaneous mandibulotomy approach を用いて切除し得た。病理組織学的診断は、神経鞘腫であった。術後、嚥下障害および嗄声を認めたが、リハビリテーションを行い、経口摂取可能な状態まで改善した。術後、約 2 年経過した現在、再発は認めていない。

キーワード：神経鞘腫，迷走神経，内頸動脈解離現象，皮下下顎離断術

緒 言

頸動脈間隙（carotid space：以下 CS）に発生する腫瘍は稀である。CS は強靱な筋膜である頸動脈鞘に囲まれた間隙で、深頸筋膜浅葉、中葉、深葉の 3 葉により構成される。その間隙内には、総頸動脈・内頸動脈・内頸静脈・下位脳神経（Ⅷ～Ⅻ）・交感神経叢・リンパ節が存在する¹⁾。CS に発生した腫瘍を取り扱うに際しての問題点としては、解剖学的に複雑な位置に存在し、その内部に重要な血管、神経が多く存在することから、ここに発生した腫瘍に対しての生検は一般的に困難である。そのため、病理組織学的診断を得ないまま治療計画を立てざるを得ないことも多い²⁾。また、CS には神経原性腫瘍が多く発生することから手術適応となった場合、術後に神経脱落症状が出現する可能性が高いと指摘されている³⁾。今回われわれは、頸動脈間隙の高位に発生した頸部迷走神経鞘腫の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者：71 歳、女性。

初診：2007 年 12 月。

主訴：左咽頭部違和感。

既往歴：60 歳時大腸癌にて S 状結腸切除術，64 歳時大腸癌肺転移にて左側肺上葉切除術。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2006 年 10 月頃より左側咽頭部違和感が出現した。近医総合病院を受診し、腫瘍性病変を指摘され、精査・加療目的に当院へ紹介受診となった。

現症：

全身所見：体格栄養中等度で特記すべき所見は認めなかった。

口腔外所見：顔貌は左右対称。腫瘍性病変およびリンパ節腫大は触知しなかった。

口腔内所見：左口蓋咽頭弓に可動性を有する弾性軟、拇指頭大の無痛性腫瘤を認めた。また、被覆粘膜は正常であった（写真 1）。

画像所見：

CT 所見：左内頸動脈・外頸動脈分岐部から上方に、長径約 50mm、境界明瞭な類円形、分葉状の腫瘤を認めた。腫瘤の圧排により左内頸動脈は前内方、左内頸静脈は後外方に偏位していた。腫瘤内部は不均一に造影された（写真 2）。

MR 所見：T1 強調像で筋肉よりやや高信号、T2 強調像でやや不均一な高信号を呈した。腫瘤の圧排により傍咽頭間隙（parapharyngeal space：以下 PPS）の脂肪組織の前方偏位が認められた。造影 T1 強調画像（前額断）において、病変は内部不均一に造影され、頭蓋底まで進展していた（写真 3A, B, C）。

臨床診断：頸動脈間隙腫瘍。

処置および経過：2007 年 12 月、全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行。皮膚切開は、乳様突起から顎下部にかけて弧状切開とした。深頸筋膜浅層で広頸筋の剥離挙上を行い、顔面動脈および静脈を結紮・切断し、顔面神経下顎縁枝は温存した。下顎骨下縁まで切開した後、顎二腹筋前腹・後腹を明示し、顎下三角を剖出した。顎下腺は視野の確保のために摘出した。顎下腺摘出部の深層で、周囲組織から舌下神経を慎重に剥離し、保存した。その後、下顎骨正中離断を加え、下顎骨を上外方、顎二腹筋を下方へ牽引し、subcutaneous mandibulotomy approach にて CS に到達した。左内外頸動脈の間に長径約 50mm の卵円形、被膜を有する腫瘤を認めた（写真 4A, B, C, D）。周囲組織

写真 1 初診時口腔内写真
左口蓋咽頭弓に可動性を有する弾性軟、拇指頭大の無痛性腫瘍を認めた(矢印)。

写真 2 造影 CT 画像(矢印:腫瘍, 小矢頭:内頸動脈, 大矢頭:内頸静脈)
長径約 50mm, 境界明瞭な類円形, 分葉状の腫瘍を認め, 腫瘍の圧排により左内頸動脈は前内方に, 左内頸静脈は後外方に偏位しており, 動静脈解離現象が見られた。腫瘍内部は不均一に造影された。

写真 3 MR 画像(矢印:腫瘍)

A: T1 強調画像にて筋肉よりやや高信号を呈し, 腫瘍の圧排により傍咽頭間隙の脂肪組織の前方偏位が認められた(矢頭)。
B: T2 強調画像でやや不均一な高信号を呈した。
C: 造影 T1 強調画像(前額断)において, 病変は内部不均一に造影され, 頭蓋底まで進展していた。

との位置関係は, 外側に下顎骨, 内側に咽頭収縮筋, 前方に内側翼突筋, 後方に椎前筋に囲まれていた。また, 舌咽神経, 舌下神経, 副神経, 交感神経幹との癒着はなく, 剥離可能であった。腫瘍の尾側において, 迷走神経は腫瘍実質内に侵入していることを確認したため, 被膜の外側にて結紮切断した。また, 切断前に麻酔科医へ術中循環動態の変化の可能性をあらかじめ説明しておいたが, 明らかな変化は認めなかった。頭側においては, 腫瘍上端は頭

蓋底を圧迫するような形で存在したため, 迷走神経と被膜との鑑別は不可能であった。摘出後, 再度頭蓋底部の確認を行ったが, 迷走神経の上端を同定することは不可能であったため神経再建は断念した。術後経過は, ホルネル症候群は生じなかったが, 神経脱落症状として嚥下障害および嘔声が認められた。そのため, 当院リハビリテーション科を対診し, 嚥下・音声リハビリテーションを行っており, 現在経口摂取可能な状態まで改善傾向を認

写真 4 術中写真

- A: Subcutaneous mandibulotomy アプローチにて頸動脈間隙に到達するため、顎下三角を明示後に下顎正中離断を加えた。
 B: 頸動脈間隙明示後、腫瘍（矢印）と内頸動脈（矢頭）を剥離した。
 C: 尾側の迷走神経が腫瘍に侵入していることを確認し切断した。（a: 腫瘍, b: 迷走神経, c: 内頸動脈）
 D: 内頸静脈（矢頭）、内頸動脈（矢印）、外頸動脈（点矢印）より腫瘍を剥離し摘出した。

写真 5 摘出標本写真（矢頭：迷走神経尾側）

- A, B: 腫瘍は類円形、分葉状を呈し、52 × 60mm 大、弾性軟で被膜を有した。断面は黄褐色および黄灰白色調部分が混在し、一部出血斑を伴っていた。

める。術後約 2 年経過した現在、再発は認められず経過良好である。

摘出標本所見：腫瘍は類円形、分葉状を呈し、52 ×

60mm 大、弾性軟で被膜を有していた。断面は黄褐色で一部出血斑を伴っていた（写真 5A, B）。また、腫瘍尾側では迷走神経断端が認められた（写真 5A 矢頭）。

写真 6 病理組織写真 (H-E 染色 × 40)

腫瘍は長楕円形の核と淡好酸性の胞体からなる紡錘形細胞の密な増殖を認めた。

病理組織学的所見：H-E 染色にて、腫瘍実質は長楕円形の核と淡好酸性の胞体からなる紡錘形細胞が密に増殖し、核の柵状配列を呈する Antoni A 型および被染性のない器質をもった疎な細胞配列と血管周囲の硝子化を呈する Antoni B 型の混在を認めた (写真 6)。免疫組織化学的染色にて、腫瘍細胞は S-100 蛋白に対して陽性を示した (写真 7)。

病理組織学的診断：神経鞘腫 (Antoni A・Antoni B 混在型)。

考 察

本邦における頸部迷走神経原発の神経鞘腫の報告はわれわれが渉猟しえた範囲において、1926 年に関口らの報告以来⁴⁾、100 例である⁵⁻¹⁸⁾。性差はなく、好発年齢は 30～50 歳代である。臨床症状として、頸部腫瘍や咽頭側壁の膨隆を認めることが多く、嗄声、嚥下障害などの神経由来を示唆する症状に乏しいことが特徴の一つである^{5,7)}。自験例においても神経圧迫症状は認めず、咽頭側壁の膨隆のみがみられた。

CS には傍神経節腫、神経鞘腫、髄膜腫が好発^{19,20)}、これらの鑑別が重要である。除外診断として、髄膜腫は隣接する髄膜の増強効果 (dural tail sign) を呈することが特徴である。傍神経節腫の場合は富血管性腫瘍であり、salt-and-pepper 様の不均一な像が特徴的である。ここで「salt」は T1 強調画像にて点状高信号、「pepper」は T2 強調画像にて腫瘍内血管の flow void を示す²⁰⁾。自験例においてはいずれも認めなかった。これらのことから神経原性腫瘍が疑われた。神経原性腫瘍のうち、神経線維腫は、造影 T1 強調像 (Gd-DTPA) にて中央部のみが増強され、T2 強調画像にて辺縁部が高信号で中央部は中間信号を呈す

写真 7 免疫組織化学的染色 (S-100 蛋白 × 40)
S-100 蛋白に対して陽性を示した。

る target sign が特徴的である²⁰⁾。一方、神経鞘腫は T1 強調画像では低信号から筋肉とほぼ等信号、T2 強調画像において一般的に高信号を示す境界明瞭な領域として描出される²⁰⁾。自験例においても同様の所見を呈していた。

本腫瘍に対する質的診断法として、穿刺吸引細胞診 (以下 FNA) の有用性が挙げられている⁵⁾。しかし、FNA の欠点として、十分量の細胞が採取されず確定診断に至らないことが報告されていることに加え^{5,21)}、自験例においては腫瘍が内外頸動脈に極めて近接していたため、エコーガイド下に穿刺する場合においても血管損傷の危険性を考慮し、施行しなかった。

CS 内には、IX、X、XI、XII 脳神経および交感神経叢が存在する。CS に発生した神経原性腫瘍は動静脈を圧迫偏位させることから、その偏位方向により、発生母地となった神経を類推することが可能であるとされている⁵⁾。IX、XII 脳神経は内頸動脈の腹側を走行するため、これらに由来する腫瘍は内頸動脈を背側へ偏位させる。交感神経叢由来の腫瘍は、内頸動脈を腹側へ偏位させる。このうち、頸動脈小体腫瘍は頸動脈分岐部に発生するため内外頸動脈の解離をきたすことが、特徴的な所見とされている^{20,22)}。総頸動脈と内頸静脈の間に存在する迷走神経由来の腫瘍は、総頸動脈を前内方へ、内頸静脈を後外方へ偏位させる動静脈解離現象 (arterio-venous dissociation) が特徴的である (図 1)^{5,20)}。さらに PPS 内の脂肪組織を前方偏位させ、帽子様変形 (capping deformity) が生じる^{19,20)}。自験例においてもこれらの所見が認められたことから迷走神経由来の腫瘍であることが疑われた。

手術法としては、PPS に対するアプローチは、①口内法 ②頸部外切開法 ③経耳下腺法 ④下顎骨離断法 (側方離断、正中離断) ⑤側頭下窩法 ⑥これらの複合法が選択され^{23,24)}、下顎骨正中離断法には、下唇を切開しない術式と

図 1 高位迷走神経鞘腫と周囲組織との位置的関係および動静脈解離現象 (文献 20 一部改変)

高位に位置する迷走神経腫瘍は、腫瘍の上縁が頭蓋底に近接するため、迷走神経の上端を確認することが困難である。また、本腫瘍は内頸動脈を前内方へ、内頸静脈を後外方へ偏位させる (動静脈解離現象)。

して Subcutaneous mandibulotomy 法²⁵⁾、Mandibulotomy with visor flap 法²⁶⁾がある。今回、私たちは Subcutaneous mandibulotomy 法を選択したが、本法の欠点としては頭蓋底方向に向かうにつれ術野が狭小化していくことがある。そのため自験例のように腫瘍が大きい場合には、一般に Push up 法²⁷⁾、Swing back 法²⁸⁾などの下唇を切開する術式が選択されることが多いと思われる。しかし、自験例は女性であり、最小侵襲であることに加え、特に整容面に対しても十分な配慮が必要であった。上記の理由から、まず、下唇切開を加えない Subcutaneous mandibulotomy 法により手術を開始した。摘出困難の場合には、下唇切開を加え、視野の拡大を計画していたが、内頸動脈を確認し、腫瘍を同定した後は被膜に沿って剥離を進めることにより下唇正中切開を加えないまま全摘出し得た。

神経の処理方法として、市村らは腫瘍と神経の位置関係を以下のごとく分類し神経温存術式の検討を行っている²⁹⁾。タイプ 1: 腫瘍表面に神経の走行が明瞭に認められ、神経を保存した上で被膜とともに全摘出する。タイプ 2: 神経が腫瘍表面被膜内を走行するが、その走行が途中で追えなくなるもので、神経の走行部位と離れた位置に切開を入れ被膜下摘出する。タイプ 3: 神経走行が全くわからず、腫瘍の両端に侵入しているように見えるもので、神経の走行と平行に被膜切開を行い摘出する。神経走行が不明瞭なタイプ 3 の症例においては術後に神経脱落症状が出

現している。自験例は、市川らの分類においてタイプ 3 であり、さらに、迷走神経上端の確認が不可能であった。

摘出後迷走神経上端を同定することが不可能であったため、神経再建は断念し、術後には神経脱落症状として嚥下障害および嚔声を認めた。術後、当院リハビリテーション科を対診し、嚥下・音声リハビリテーションを行っており、現在経口摂取可能な状態まで改善傾向を認める。術後約 2 年経過した現在、再発は認めていないが、今後も慎重な経過観察が必要と考えられる。

結 語

頸動脈間隙の高位に発生した頸部迷走神経鞘腫の 1 例を経験したので、その概要を報告した。

文 献

- 1) 加藤明子, 藤村武之, 他: 迷走神経咽頭枝由来と疑われた頸部神経鞘腫例. 耳鼻臨床 99: 591-594, 2006.
- 2) 鈴木賢二, 林 裕一, 他: 頸部迷走神経に生じた神経鞘腫の 1 例. 耳鼻臨床 76: 2935-2940, 1983.
- 3) Valentino, J., Bogges, M.A., et al.: Expected neurologic outcomes for surgical treatment of cervical neurilemmomas. Laryngoscope 108: 1009-1013, 1998.
- 4) 関口蕃樹, 大家武夫, 他: 迷走神経腫瘍の手術治療例並びに其病理組織学的所見に就て. 日外会誌 27: 885-894, 1926.
- 5) 古川政樹, 山下耕太郎, 他: 頸部迷走神経より発症した神経鞘腫の 3 例. 日耳鼻会報 91: 1256-1266, 1998.
- 6) 木田亮紀, 藤井まゆみ, 他: 頸部の迷走神経鞘腫一症例報告と本邦例の集計. 耳鼻臨床 83: 275-286, 1990.
- 7) 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.
- 8) 五十嵐 充, 金地明星, 他: レックリングハウゼン病迷走神経鞘腫. 耳鼻臨床 90: 1053-1058, 1997.
- 9) 広川雄三, 池田耕士, 他: 特徴的な血管偏位を呈した頸部迷走神経鞘腫の 1 例. 臨放 42: 1617-1620, 1997.
- 10) 楯谷一郎, 北村守正, 他: 副咽頭間隙腫瘍 7 例の検討. 耳鼻臨床 90: 1387-1392, 1997.
- 11) 杉 桂二, 杉野圭三, 他: 頸部迷走神経鞘腫の 1 例. 広島医学 52: 438-440, 1999.
- 12) 嶋崎孝嗣, 小川 明: 頸部迷走神経鞘腫の 1 症例: 防衛衛生 47: 233-237, 2000.
- 13) 斉藤 幹, 毛利光宏, 他: 迷走神経障害による嚥下障害. 耳鼻臨床 48: 357-359, 2002.
- 14) 丸毛みゆき, 庄司和彦, 他: 巨大副咽頭間隙迷走神経鞘腫例. 耳鼻臨床 97: 351-355, 2004.
- 15) 宮脇剛司, 西岡弘記, 他: 左下顎角部に発生した迷走神経鞘腫の 1 例. 日形会誌 25: 344-349, 2005.
- 16) 小河孝夫, 花満雅一, 他: 頸部迷走神経鞘腫の 3 例. 耳鼻臨床 100: 467-472, 2007.
- 17) 森本博司, 杉野圭三, 他: 頸部迷走神経鞘腫を合併し、リンパ節転移との鑑別が困難であった再発甲状腺癌の 1 例. 広島医学 61: 220-222, 2008.
- 18) 馬場 優, 渡部高久, 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.

- 19) H. Ric Harnsberger: Handbook of Head and Neck Imaging, second edition, Medical Sciences International, USA, 1995, 73-85.
- 20) 村上 泰, 飯沼寿孝, 他: イラスト手術手技のコツ 耳鼻咽喉科・頭頸部外科—咽喉頭頸部編. 第1版, 東京医学社, 東京, 2005, 216.
- 21) 石津吉彦, 竹内裕一, 他: 副咽頭間隙にみられた腺様嚢胞癌例. 耳鼻臨床 85: 89-94, 1992.
- 22) 服部賢二, 中川 崇, 他: 頸部神経原性腫瘍の画像による起源神経同定についての考察. 頭頸部腫瘍 28: 125-129, 2002.
- 23) 行木英生, 塩谷彰浩, 他: 上部副咽頭間隙の腫瘍に対する手術アプローチの検討. 口腔咽頭科 8: 423-430, 1996.
- 24) Olsen, K.D.: Tumors and Surgery of the Parapharyngeal Space. Laryngoscope 104: 1-28, 1994.
- 25) Teng, M.S., Gerden, E.M., et al.: Subcutaneous Mandibulotomy: A New Surgical Access for Large Tumors of the Parapharyngeal Space. Laryngoscope 113: 1893-1897, 2003.
- 26) 岸本 曜, 平塚康之, 他: バイザー皮弁挙上による下顎正中離断. 耳鼻臨床 96: 897-901, 2003.
- 27) 安田範夫, 村上 泰, 他: 下顎 Push up 法を用いた副咽頭間隙へのアプローチ. 頭頸部腫瘍 22: 428-433, 1996.
- 28) Spiro, R.H., Gerold, F.P., et al.: Mandibular "swing" approach for oral and oropharyngeal tumors. Head Neck Surg 3: 371-378, 1981.
- 29) 市村恵一, 中原はるか, 他: 頸部神経鞘腫に対する神経機能温存術式の検討. 耳喉頭頸 72: 59-64, 2000.

Schwannoma of the cervical vagus nerve arising at a high position: A case report

Yusuke Sato, Yoshihide Ota, Hirotaka Kurabayashi,
Masashi Sasaki, Kazumi Izawa and Hiroshi Yamazaki

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Surgery,
Tokai University School of Medicine
(Chief: Prof. Yoshihide Ota)

Abstract

We report here a case of schwannoma of the cervical vagus nerve that occurred high in the parapharyngeal space. The patient was a 71-year-old female who visited our hospital with the chief complaint of a sensation of foreign matter in the pharynx. Findings in the oral cavity included a painless mass of about 50 × 60 mm in size in the left palatopharyngeal arch. CT and MR showed a mass occupying the left carotid space. The mass had caused dissociation of the common carotid artery and internal jugular vein and extended to the base of the skull. We resected the tumor using the subcutaneous mandibulotomy approach. The histopathological diagnosis was schwannoma. After surgery, the patient showed dysphagia and hoarseness but she underwent rehabilitation and was able to ingest food orally. Two years postoperatively, no signs of recurrence have appeared.

Key words : schwannoma, vagus nerve, internal arterio-venous dissociation, subcutaneous mandibulotomy approach

Requests for reprints to: Dr. Sato Y., Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Surgery, Tokai University School of Medicine, 143, Shimokasuya, Isehara, Kanagawa, 259-1193, Japan