

高齢者の下顎に発症した神経鞘腫の1例

今井 努¹⁾ 大久保 恒正¹⁾ 大久保 有¹⁾ 深本 真央²⁾ 波多野 貴一²⁾ 米本 和弘²⁾
柴田 敏之²⁾ 岡本 清尚³⁾

1) 高山赤十字病院 歯科口腔外科

2) 岐阜大学大学院医学系研究科病態制御学講座口腔病態学講座

3) 高山赤十字病院 病理診断科

抄 録：神経鞘腫は Schwann 神経鞘細胞に由来するが、顎骨内に発生することは稀である。今回我々は高齢の患者の右下顎に発症した神経鞘腫を経験し手術的加療を行ったので報告する。

【症例の概要】患者：87 歳、男性。初診：2016年 2 月。主訴：右下顎骨骨体部の膨隆。現症：口腔外所見：右頬部から下方にかけびまん性の腫脹。右下唇の知覚鈍麻は若干あり。口腔内所見：上下顎とも無歯顎、右下顎小臼歯部から右下顎臼後結節にかけてびまん性、骨様硬の膨隆あり。X 線所見：右オトガイ孔より後方下顎小臼歯部から右下顎枝の半分に至る境界明瞭、均一な多腔性透過像。CT：右側下顎骨骨体部から下顎枝にかけ長径 51mm 頬舌的に 40mm 高さ 62mm 大の内部やや不均一な充実性病変あり。舌側の皮質骨は菲薄化圧迫吸収あり。臨床診断：右下顎骨良性腫瘍。処置および経過：初診時同病変を穿刺吸引、暗赤色の内容物を 30ml 吸引。その後同部から開窓、生検施行。不全角化を伴う重層扁平上皮の診断。病変の可及的の縮小および下顎骨の再生目的に開窓部から洗浄を継続したが変化ないため 2016年 5 月に再度生検開窓施行。線維芽細胞の増殖の診断。2017年 1 月全身麻酔下で腫瘍摘出術を施行。近心はオトガイ孔、遠心は下顎頭からやや下方で下顎骨を含めて腫瘍を切除、プレートで即時再建施行。術後の経過は良好で術後第 7 日で退院。【結果】87 歳男性の右下顎骨に発生した巨大な神経鞘腫の症例を経験したので報告する。

索引用語：神経鞘腫 (schwannoma) 下顎骨 (mandible) 高齢者 (elderly man)

A case of schwannoma in the mandible in an elderly man.

IMAI Tsutomu¹⁾ OOKUBO Tsunemasa¹⁾ OOKUBO Yuu¹⁾ FUKAMOTO Mao²⁾
HATANO Kiichi²⁾ YONEMOTO Kazuhiro²⁾ SHIBATA Toshiyuki²⁾ OKAMOTO Kiyohisa³⁾

1) Japanese Red Cross Takayama Hospital, Dept.of OMS, Takayama Japan

2) Gifu Univ. Dept. of OMS

3) Japanese Red Cross Takayama Hospital, Dept.of diagnostic pathology, Takayama Japan

I 緒言

神経鞘腫は Schwann 鞘由来の Schwann 細胞の増殖と膠原繊維性基質からなる良性腫瘍であるが、顎骨内に発生することは稀である^{1,2)}。今回我々は高齢の患者の右下顎に発症した神経鞘腫を経験し手術的加療を行ったので報告する。

II 症例

87歳 男性。
初診：2016年 2 月。
主訴：右下顎骨骨体部の膨隆にて近医診療所より

紹介。

現症：自発痛なし。顎運動問題なし。右下唇の知覚鈍麻は若干あり。

既往歴：高血圧にて近医より内服薬処方あり。肝硬変の既往あるも完治したとのこと。

口腔外所見：右頬部から下方にかけびまん性の腫脹あるも顔貌の非対称性はそれほど著明ではなかった。開口量問題なし。右オトガイに若干の知覚鈍磨あり。

口腔内所見：上下顎とも無歯顎。義歯の使用は可能。

右下顎小臼歯部から右下顎臼後結節にかけてびまん性の膨隆あり。

触診では弾性軟の部分と骨様硬の部分があり波動が触れた。圧痛なし。

表面粘膜はやや白色を帯びているが正常。(図1)

X線所見：パノラマ所見では右オトガイ孔より後方下顎小白歯部から右下顎枝の半分に至る境界明瞭、均一な多胞性透過像。CT所見では右側下顎骨体部から下顎枝にかけ長径 51mm 頬舌的に 40mm 高さ 62mm 大の内部やや不均一な充実性病変あり。舌側の皮質骨は菲薄化圧迫吸収で連続性が保たれていない。下顎管は下方に圧平されており画像上ははっきり確認できなかった。(図2,3)

臨床診断：右下顎骨腫瘍。

処置および経過：初診時波動触れたため同病変より口腔内から穿刺吸引、暗赤色の内容物を 30ml 吸引した。その後局所麻酔下同部から開窓、生検施行。内部は充実性の病変であった。病理診断では不全角化を伴う重層扁平上皮の診断を得た。病変の可及的の縮小および下顎骨の再生目的に開窓部から洗浄を継続したが、病変の縮小傾向はあまり見られなかった。増大傾向も見られなかった。2016年5月 再度生検開窓施行し、線維芽細胞の増殖の診断を得た。2017年1月13日 全身麻酔下右下顎骨区域切除 腫瘍摘出術 プレート即時再建術施行した。手術は右顎下部より皮膚切開、剥離を進め下顎骨を剖出。近心はオトガイ孔より遠心、遠心は下顎頭頸部下方から下顎切痕に向かって病変を含んで下顎骨を区域切除した。下顎骨の頬側骨膜の剥離は容易であったが、舌側は腫瘍が吸収した顎骨から一部顎舌骨筋に癒着しており正常組織を含めて切除、病変を摘出した。舌神経は保存した。

摘出後リコンストラクションプレートで即時再建術施行しドレーンを挿入、術式終了とした。(図4)手術時間は160分、出血量は52gであった。術後の経過は良好で術後第7日で退院した。現在手術後1年半を経過しているが腫瘍の再発なく、再建部の機能も良好に経過している。病理組織所見：摘出物は6.5cm×4.5cm×3cm、頬側皮質骨は菲薄化膨隆があった。

舌側は下顎骨を圧迫吸収、一部は病変と顎舌骨筋と癒着がみられた。断面は乳白色ゼラチン状



図1 口腔内

上下顎とも無歯顎、右下顎小白歯部から右下顎臼にかけてびまん性、骨様硬と一部弾性軟の膨隆あり
波動を触れた。自発痛 圧痛なし。初診時同病変を穿刺吸引、暗赤色の内容物を 30ml 吸引。

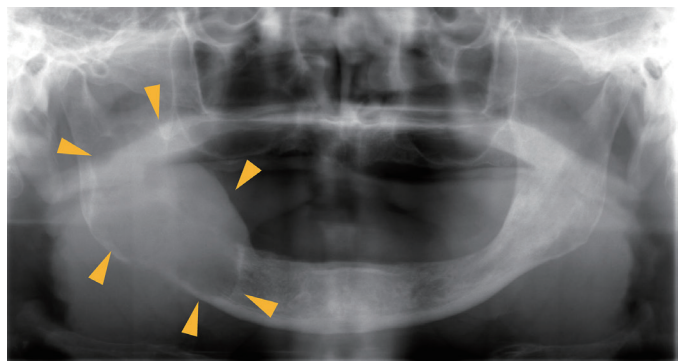


図2 パノラマレントゲン

右オトガイ孔より後方に下顎頭頸部に至る境界明瞭な多胞性の透過像 下顎管は不明

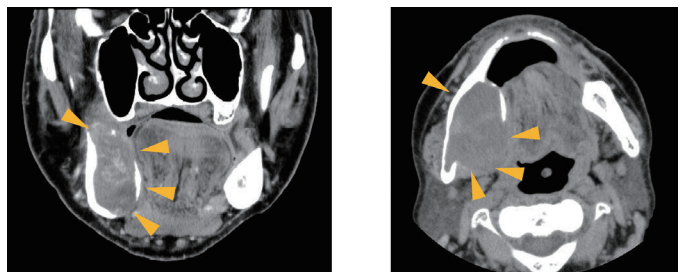


図3 CT所見

右側下顎骨体部から下顎枝にかけ長径 51mm 頬舌的に 40mm 高さ 62mm 大の腫瘍性病変 内部やや不均一な充実性病変あり。舌側の皮質骨は菲薄化圧迫吸収。下顎神経は認めず。



図4 術後パノラマ

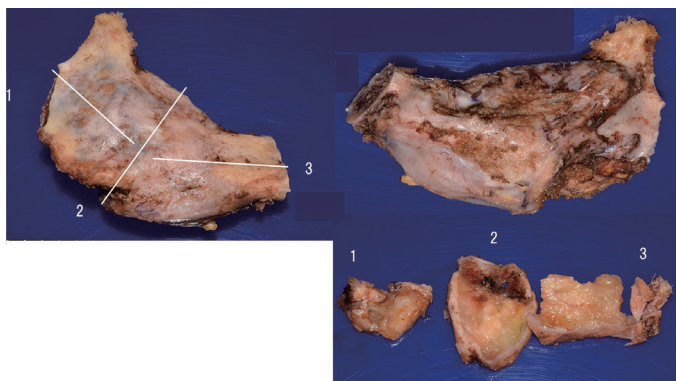


図5 摘出物所見

6.5cm×4.5cm×3cm頬側皮質骨は菲薄化膨隆あり。
舌側は下顎骨を圧迫吸収し舌側軟組織と癒着あり。
断面はゼラチン状 内部は弾性軟であった。
下歯槽神経束は肉眼的に確認できず。

で内部は弾性軟であった。下歯槽神経束は肉眼的に確認できなかった。(図5)

HE染色の標本の弱拡大では腫瘍細胞の密なところ(A:Antoni-A)と疎の部分(B:Antoni-B)が混在しているのが観察された。腫瘍細胞が密な部分では腫瘍細胞は類円形ないし紡錘形の核を有し一部に長軸に平行に柵状配列が見られた。(図6)腫瘍細胞が疎な部分では細胞成分はまばらで腫瘍細胞は特定の配列を呈さず基質は浮腫状で一部粘液変性 線維化を伴う様子が観察された。(図7)S-100蛋白染色では、S-100蛋白陽性で神経由来が示唆された。(図8)

病理組織学的診断：神経鞘腫 (Antoni-A B混合型)。

Ⅲ 考察

神経鞘腫は神経鞘の Schwann 神経鞘細胞に由来する良性腫瘍で、多くは皮下組織や筋肉などの軟部組織に発生するが、脳神経、脊髄神経、稀には消化管などいろいろな部位に発生する^{1,2)}。顎口腔領域に生じることは比較的まれでRossiらは神経鞘腫全体の0.02%と報告している³⁾。本腫瘍は顎口腔領域では主に舌や口腔底、口唇などの軟組織に発生⁴⁾し顎骨内に発生することは稀である。顎骨では主に下顎骨に発生し、下顎骨体部に好発する^{5,6)}。本腫瘍が下顎骨中心性に発生する頻度は黒川らの報告では顎口腔領域に発生した神経鞘腫216例について検討したところ舌

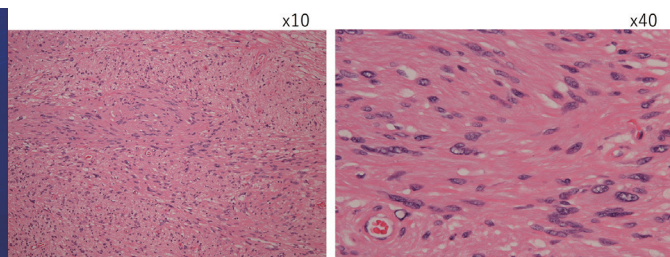


図6 病理学的所見 H-E Antoni-A 型
腫瘍細胞は類円形ないし紡錘形の核を有し、一部に長軸に平行に柵状配列が見られた。
細胞質はエオジン好性。

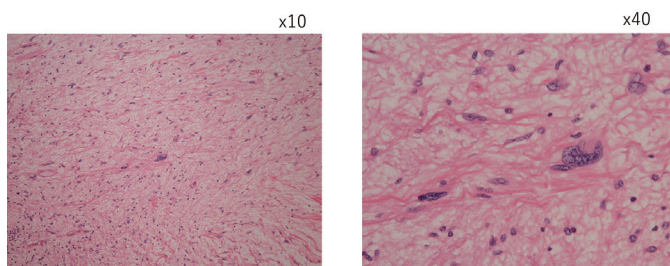


図7 病理学的所見 H-E Antoni-B 型
細胞成分はまばらで腫瘍細胞は特定の配列を呈さず、基質は浮腫状で一部粘液変性。
変性により奇異で大型の核も含まれている。

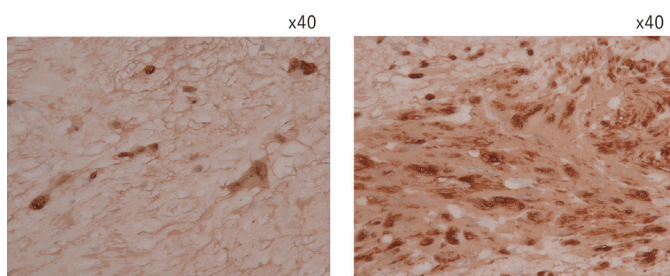


図8 病理学的所見 S-100
S-100 蛋白陽性 神経由来が示唆された。

が一番多く(35.2%)下顎骨に発生したものは20例(9.3%)と報告している⁷⁾。また亀谷らの顎口腔領域に発生した神経鞘腫109例の検討では下顎骨に発生した症例は4例(3.7%)と報告している⁴⁾。またGalloらは神経鞘腫152例について検討したところ顎口腔領域で発症した症例は18例(11.8%)と報告している⁸⁾。

発症年齢について江口らは本邦報告の下顎骨中心性神経鞘腫30例では5歳から64歳で平均年齢は38.1歳と報告している⁹⁾。村山らは14例では5歳から86歳で平均年齢は37.1歳であった¹⁰⁾。Angalaらの英文報告例43例では8歳から72歳で平均年齢は34歳と報告している¹¹⁾。また黒川らの報告では顎口腔領域の軟組織に発生した神経鞘

腫の平均年齢は28.4歳と軟組織の神経鞘腫は若年者に多く下顎中心性の発症年齢はやや高いことが示唆された⁷⁾。これは顎骨中心性の場合 緩慢に無症状に発育する良性腫瘍のため軟組織と比較して発見が遅くなる傾向があるため発症年齢が高いものと思われた。自験例は渉猟しえた文献的報告例の最高齢を1歳上回る87歳で渉猟しえた範囲では最高齢であると思われた。

性差については、江口らは男女比1:2で女性が多いと報告している⁹⁾。村山らは男女比1:1.3で女性が多いと報告している¹⁰⁾。Angalaらは男女比1:1.5と女性がやや多いと報告している¹¹⁾。また黒川らも顎口腔領域の軟組織に発生した症例で男女比1:1.4と報告している⁷⁾。他方、石井らは男性がやや多いとの報告があり¹²⁾、Kunらは性差がないと報告しており¹³⁾本腫瘍の性差についての特徴は明らかではないと思われる。

部位および大きさでは 村山らの報告では14例中10例が下顎骨体部、4例が下顎枝に至る症例であった¹⁰⁾。江口らの報告では30例中8例が下顎枝から下顎体部に至る症例であった⁹⁾。村山らの報告では、顎骨中心性の神経鞘腫では20~50mmの範囲が多いとのことであった¹⁰⁾。黒川らの報告では軟組織に発症した神経鞘腫では小指頭大~拇指頭大が多いとのことであった⁷⁾。また石川らの報告でも軟組織では1~2cm程度であると報告されている¹⁴⁾。

治療法では村山らの報告では14例中2例で下顎骨区域切除術 他の12例では腫瘍摘出術が行われていた¹⁰⁾。また江口らの報告では30例中7例が下顎骨区域切除 下顎骨半側切除が行われていた。範囲の限局した単胞性の症例では一塊切除、搔把例もあった。下歯槽神経は6例で切断されていた⁹⁾。自験例は摘出標本が長径 51mm 頬舌的に40mm 高さ 62mmと報告例のなかでも一番大きく そのため手術が下顎骨の離断および 即時プレート再建術と大掛かりなものとなった。

摘出物の病理組織型は、村山らは顎骨中心性に発症した神経鞘腫14例ではAntoni-A型が5例 Antoni-B型が1例 Antoni-AB混合型が7例と報告している¹⁰⁾。

黒川らは顎口腔領域に発症した神経鞘腫ではAntoni-A型が60.9% Antoni-B型が4.7%

Antoni-AB混合型が34%と報告している⁷⁾。本症例は混合型であった。

IV 結語

高齢者で広範囲に及ぶ顎骨中心性に発症した神経鞘腫を経験した。

顎骨中心性の神経鞘腫のためか視診や症状が明かにならず、初診時は腫瘍は顎骨の右おとがい孔より後方下顎枝まで拡大していた。

手術は下顎骨区域切除、腫瘍切除、再建用プレートによる再建術を施行した。下歯槽神経束は切除し保存できなかったが、術後の経過は再発なく再建部位の機能も良好である。

文献的に渉猟した範囲では今回経験した症例は発症した年齢は最高齢で、腫瘍の大きさもほぼ最大に近いようであった。

高齢者でも顎骨内の腫瘍が時間をかけてほぼ無症状に拡大することはまれにあるため、特に無菌顎の高齢者でも定期的もしくは、スクリーニングとしてパノラマレントゲンなどを撮影する意義はあったと考えられた。

V 参考文献

- 1) 高木實、他：口腔病理アトラス 第2版、文光堂、東京、2006、255
- 2) Dabid I.G. and Peter L.L.: Greenfield's Neuropathology 6th ed. Vol.2: ARNOLD. NewYork, 1997,713-723
- 3) Rossi,G.B.and De Sanctis,A.:Sui Neurilemmomi del cavo orale. Riv Anat Pat Oncol 22: 1047-1071, 1961
- 4) 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: 263-272、1981
- 5) 宮手浩樹、壽岡一司、他：下顎骨中心性に生じた神経鞘腫の1例 日口外誌 46: 42-44、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) 黒川英雄、都留昭二、他：神経鞘腫の5例
日口外誌 36：1764-1755、1990
- 8) Gallo W.J., Moss M., *et. al.*: Neurilemoma.
Review of the literature and report of five
cases. J Oral Surgery 35:235-236,1977
- 9) 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、2002
- 10) 村山大悟、永井宏和、他：高齢者の下顎に発
症した顎骨中心性神経鞘腫の1例 口科誌
54：368-372、2005
- 11) Angela C., John C., *et. al.*: Intraosseous
schwannoma of the mandible: a case report
and review of the literature. Oral Surg Oral
Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 96 :54-
65,2003
- 12) 石井純一、神谷貴充、他：口腔顔面領域の
神経鞘腫 日口外誌 47：89-92、2001
- 13) 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 Mxillofac Surg
51：769-771,1993
- 14) 石川悟朗：神経鞘腫、石川悟朗監修：口腔病
理学、Ⅱ：永末書店、京都、1982、769-771
- 15) 白本光鶴、白本光七、他：下顎骨体部に発
生した神経鞘腫の1例 日口外誌 29：547-
552、1983