

悪性を疑わせた硬口蓋神経鞘腫の1例

児玉泰光¹, 高木律男¹, 星名秀行¹, 飯田明彦¹,
福田純一¹, 伊藤壽介², 林孝文², 朔敬³

新潟大学歯学部口腔外科学第二講座¹

(主任：高木律男 教授)

新潟大学歯学部歯科放射線学講座²

(主任：伊藤壽介 教授)

新潟大学歯学部口腔病理学講座³

(主任：朔・敬 教授)

A case of neurilemmoma of the hard palate, suspected a malignant tumor.

Yasumitsu KODAMA¹, Ritsuo TAKAGI¹, Hideyuki HOSHINA¹,
Akihiko IIDA¹, Jun-ichi FUKUDA¹, Jusuke ITO²,
Takafumi HAYASHI², Takashi SAKU³

Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Niigata University¹

(Chief : Prof. Ritsuo Takagi)

Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Faculty of Dentistry, Niigata University²

(Chief : Prof. Jusuke Ito)

Department of Pathology, Faculty of Dentistry, Niigata University³

(Chief : Prof. Takashi Saku)

Key words : palate (口蓋), neurilemmoma (神経鞘腫), clinical malignancy (臨床的悪性),
surgical intervention (外科的侵襲),

Abstract : We report a case of a neurilemmoma on the hard palate, which was first suspected of malignancy because of its rapid growth after an incisional procedure.

A 49-year-old woman was referred to our hospital, who complained of a swelling on the right side of her hard palate. The swelling consisted of two different portions : one was rather sessile swelling measuring 27×21mm in size and the other was a polypoid mass, measuring 17×14×7mm in size, arising from the surface of the former. Cytology from the ulcerative surface of the polyp, this tumor showed Papanicolaou class IV, and the polypoid portion gradually increased its size even after admission to the hospital. In addition, CT and MRI showed that these two parts showed almost identical images. Therefore, we suspected malignancy, and performed a biopsy sample from the polypoid part of the tumor only to get a histopathologic diagnosis of granulation tissue. Consequently, another biopsy specimen was taken deeply from the sessile part, which gave a diagnosis of neurilemmoma.

From the experience of the present case, it is suggested that oral tumorous lesions tend to be masked by such an inflammatory reaction as extraordinary growth of granulation tissues when they were deeply located. Surgical intervention by incisions may induce enhanced inflammatory reactions of stromal cells around tumors, because the oral mucosa is exposed physio-chemical and microbial stimulants during eating/drinking and mastication.

抄録： 他医院での切開処置後に急速な増大を示し、臨床的に悪性腫瘍が疑われ、診断に苦慮した硬口蓋神経鞘腫の1例を経験した。初診時、右側硬口蓋に27×21mm、周囲粘膜色の半球状の腫脹と、その中央の切開部から17×14×7mmの赤色で有茎性の腫瘍が認められ、腫瘍表層の細胞診はPAP IVであった。初診後も腫瘍は徐々に増大し、上顎悪性腫瘍を疑って、腫瘍増大部から生検を施行したが、病理診断は肉芽組織であった。そこで、より深部から再度生検し、神経鞘腫の確定診断を得、全麻下にて腫瘍摘出術を行った。本症例は、適切な診断前に安易な切開処置が加えられ、この外科的侵襲が、反応性肉芽組織の急速な増殖と、炎症に伴う表層細胞の異型化を招き、臨床的に悪性腫瘍との鑑別を困難にしたものと考えられた。口腔粘膜は、摂食や咀嚼による物理的、化学的な外傷性刺激が日常的に加わりやすい部位であるうえ、本症例のような切開に伴う二次的な感染も、相乗的に病変を修飾するものと推察された。したがって、腫瘍性病変において、より正確な確定診断を得るためには、画像により病変の主体を見極めると共に、炎症などの二次的な修飾の少ない基部から、腫瘍実質の的確な生検を行うことが肝要であると考えられた。

結 言

今回私達は、他医院での切開処置後に急速な増大を示し、臨床的に悪性が疑われ、診断に苦慮した硬口蓋神経鞘腫の1例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患者：49歳、女性。

初診：1998年7月7日。

主訴：右側硬口蓋の腫脹。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：1996年、開業医にて右側硬口蓋の腫脹を指摘されたが、自覚症状がないため放置。1998年6月29日、同部の腫脹が増大しているとの判断で、同医にて切開処置を受けたが排膿はなかった。その後、切開部から腫瘍が著しく増大してきたため、紹介にて当科を初診した。

現症：全身所見；身長155cm、体重57kg。口腔外所見；顔貌対称、顎下及び頸部リンパ節に異常所見は認められず。口腔内所見；76|部硬口蓋を中心に、27×21mmの半球状の境界明瞭な腫脹があり、同部は通常の粘膜色を呈するも、切開部より17×14×7mmの赤色で有茎性の腫瘍が、正中方向に突出していた。病変は全体に弾性軟で圧痛を伴っていたが、周囲に硬結はなかった。6|は残根状態であった(写真1)。

X線所見：病変に隣接する7643|に根尖病巣は認められなかった。

CT/MRI所見：腫瘍は、右大口蓋孔前方で口蓋骨に接する半球状の膨隆部と、正中方向に伸び出す有茎性のポリープ状の腫瘍部分からなり、ポリープの基部に一部くびれはあったものの、両者に明らかな境界は認められなかった。また造影後、内部は不均一となり、半球状の膨隆部は全体に易造影性を示し、ポリープ状の腫瘍部分はわずかに造影性が低下していた(写真2-A)。MRIでも、2つの病変に明らかな境界は認められず、T2強調画像にて、同程度の高い信号強度を呈した(写真2-B)。一方、

口蓋骨との境界は明瞭で、同部には皿状の骨吸収像が認められた(写真2-C)。

臨床検査所見：腫瘍マーカーでは、SCC抗原が1.7ng/mlとやや高値を示した。切開部から突出した腫瘍表面の擦過細胞診では、パパニコロークラスIV(PAP IV)の診断であった。

臨床診断：上顎悪性腫瘍の疑い。

処置及び経過：初診後も切開部から突出した腫瘍は徐々に増大し、初診6日後には硬口蓋正中を越えるまでに至ったため、同部が主に腫瘍実質であると考え、MMC 4mg点滴静注下、ポリープ部を含むように生検を施行した(写真3)。しかし腫瘍細胞は認められず、病理診断は肉芽組織であった。そこで、より深部から再度生検を施行し、神経鞘腫の確定診断が得られた後、全麻下腫瘍摘出術を行った。手術は5mmの安全域を設定し、右大口蓋孔で神経血管束を結紮切断後、腫瘍を摘出した。肉眼的に腫瘍と大口蓋神経血管束との連続性はなかった。腫瘍に接していた口蓋骨には、皿状の圧迫性吸収が認められた。

摘出物所見：摘出物は口腔粘膜に被覆された37×24×20mmの白色の軟組織で、口蓋側には緑黄褐色の潰瘍を伴った直径20mmのポリープ状の腫瘍が突出していた。

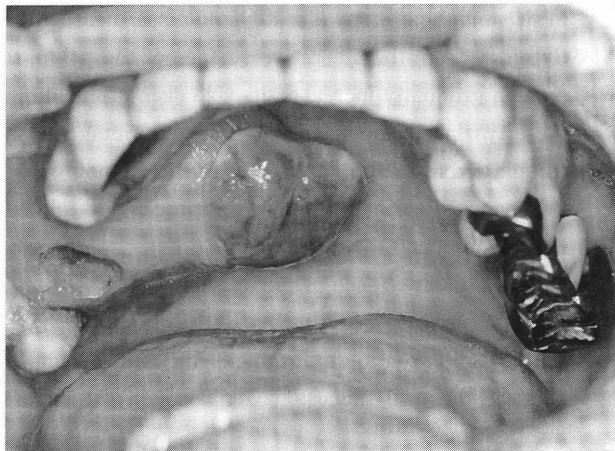


写真1 初診時

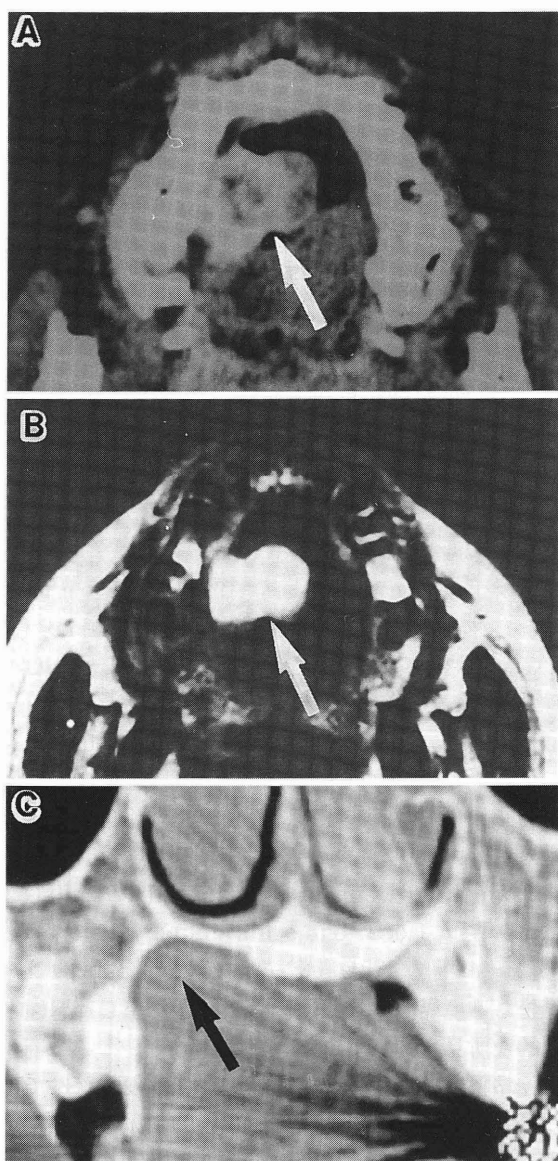


写真2 初診時

- A CT 水平断軟組織表示
B MRI 水平断 T2強調
C CT 冠状断骨表示

潰瘍中央部を通る剖面では、粘膜下に周囲と境界明瞭な類円形、灰黄白色、充実性で弾性軟の腫瘍組織が認められた(写真4-A)。

病理組織学的所見：切開後急速に増大したポリープ状の腫瘍部分は、好中球を主とした炎症性細胞の浸潤と、毛細血管の増生拡張、活性化した線維芽細胞を伴う幼弱な肉芽組織からなり、被覆粘膜は広範囲に潰瘍化していた(写真4-B)。深部に位置する腫瘍組織には明らかな被膜は認めないものの、周囲との境界は明瞭であった。腫瘍は大部分で濃染性の核を有する紡錘形細胞の細胞密度の高い充実性増殖からなり、棚状の細胞配列と間質の波状の微細線維が特徴的であった(写真4-C, 4-D)。免疫

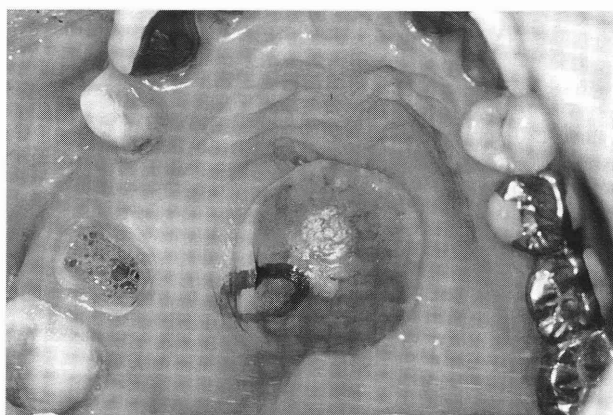


写真3 初診6日後、生検時

組織学的には、腫瘍実質はS-100蛋白質、NS エノラーゼ、ビメンチン陽性であった。

病理診断：神経鞘腫。

考 察

神経鞘腫の発生頻度は、顎口腔領域に生じる良性腫瘍の中で、1.5%¹⁾、4.6%²⁾などの報告があり、比較的稀である。しかも好発部位としては舌が知られており³⁾、Gallo は、顎口腔領域の症例157例中 45.2%⁴⁾、山田らは35~45%⁵⁾と報告している。これに対し硬口蓋での発生報告は少なく7~9%^{4,6)}にすぎない。

顎口腔領域での神経鞘腫は、一般に表面平滑で弾性軟、境界明瞭な限局性腫瘍を呈し、多くは無痛性である⁶⁾。発育は緩慢で、無徴候性の発育がその一番の特徴として挙げられている⁵⁾。しかし、硬口蓋では、易出血性の肉芽腫様腫瘍の様相を呈した症例が、自験例をふくめて国内で4例(いずれも女性患者)報告されており^{7,8,9)}、部位特異性の症状として注目されてよい。本症例も、当科初診の2年前から、腫瘍の存在が疑われる病歴があり、無徴候性の緩慢な発育という、本腫瘍の特徴を有していた。しかし、適切な診断前に安易な切開処置が加えられ、この外科的侵襲によって、反応性肉芽組織の急速な増殖が生じ、かつ、潰瘍部の再生上皮の異型化が、擦過細胞診でのパパニコロウクラスIV (PAP IV) の診断となり、これらが臨床的に悪性腫瘍との鑑別を困難にしたものと考えられた。今回我々が検索し得た限り、外科的侵襲を契機にして、急速に増大した肉芽組織新生の報告はなく、本症例は極めて稀な事例と言えよう。

初診時の画像所見において、病変と接する口蓋骨には皿状の吸収像が認められ、また、2年前からの腫脹と急速に増大したポリープ状の腫瘍との間には、明らかな差異は認められなかったため、内部不均一な易造影性の所見から全体として血管神経系の良性腫瘍が疑われた。し

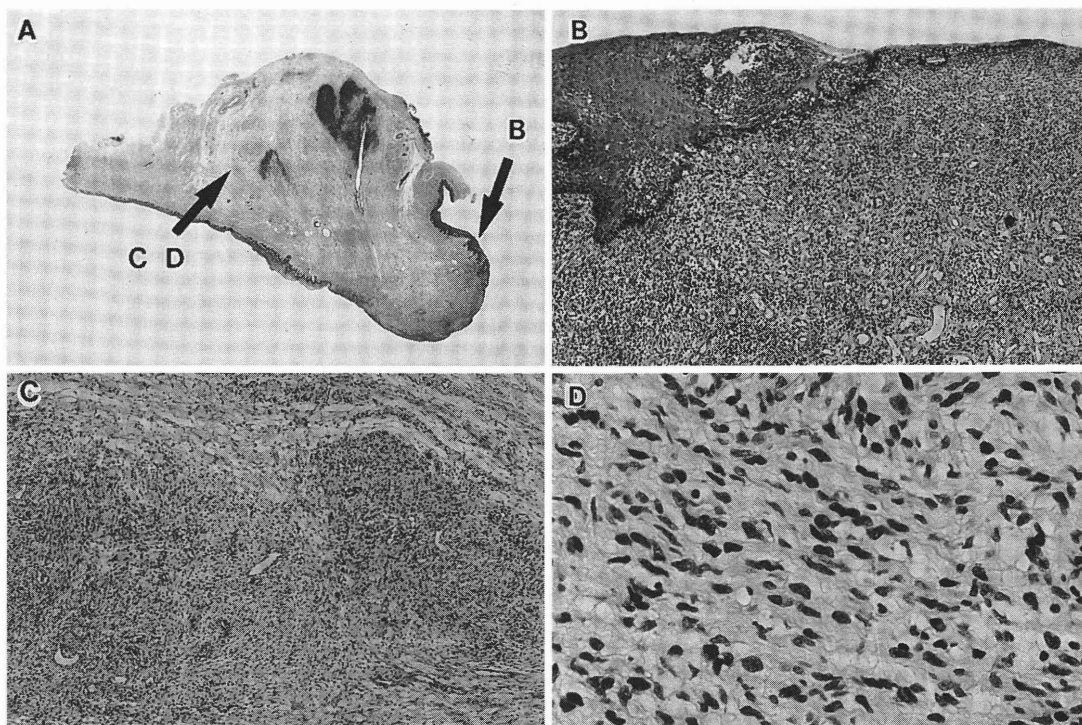


写真4 摘出物病理組織像 (H-E 染色)

- A ルーベ像
- B 肉芽組織
- C 腫瘍実質 (弱拡大)
- D 腫瘍実質 (強拡大)

かし、ポリープ状の腫瘍が、肉眼的に赤色で軟性組織であった点からは、後顧的に反応性病変も鑑別診断に加味すべきであった。臨床的に本症例との鑑別を要する良性腫瘍として、血管腫、神経線維腫、多形性腺腫などが挙げられる^{6,10)}。血管腫は、視診を主とした臨床像から容易に鑑別可能であり、本症例の所見とは一致しない。神経線維腫等の線維組織成分が豊富な病変は、一般にT1, T2強調画像共に低信号を呈するため¹¹⁾、鑑別診断から除外し得た。したがって、硬口蓋に生じる腫瘍性病変として、多形性腺腫との鑑別が最も重要になる。多形性腺腫は軟硬口蓋移行部に頻発し、画像診断にて、本症例と同様に、易造影性や不均一な内部構造を呈することも多いが、造影速度が緩慢である点で鑑別が可能である。ただ、悪性多形性腺腫の場合、所見としては、長い病歴期間後に、潰瘍化あるいは急激に増大するなどの傾向があり、良性病変からの悪性転化とすると、口蓋骨における皿状の吸収像も適当とされ、本症例と類似した特徴を有しているものと思われた^{12,13)}。しかし、外向性のポリープ様増殖の報告はこれまでない。

一方、硬口蓋部には、唾液腺癌^{3,10)}をはじめ、様々な悪性腫瘍が生じるが、本症例は、画像的にはこれら悪性腫瘍に特徴的な、周囲への浸潤を示唆する骨破壊像は示さ

ず、むしろ境界明瞭な圧迫性骨吸収像を呈し、悪性とは否定的な所見を有していた。

口腔粘膜は、本症例の様に切開に伴う侵襲だけではなく、摂食や咀嚼による物理的、化学的刺激のほか、感染による修飾も受けやすい部位と言える。とくに、口蓋の神経鞘腫で、肉芽組織様反応を伴うことが多く、妊婦あるいは閉経期女性に多いことも^{7,8,9)}考慮すると、歯肉におけるエプーリス同様の過剰肉芽反応が口蓋粘膜でも惹起される可能性がある。したがって、ポリープ状腫瘍の場合、炎症性修飾の少ないポリープ基部からの生検が望ましい¹⁴⁾。また、再生上皮の異型は、腫瘍性異型と鑑別しがたいといった細胞診の限界も理解しておく必要がある。さらに、硬口蓋に生じる腫瘍の種類によっては、腫瘍実質を被覆する上皮の厚さも異なる。したがって、より正確な確定診断を得るためには、画像により病変の主体を見極めて、腫瘍実質を確実に含むよう生検を施行することが肝要であると考えられた。本症例のように主病変が深部にある場合、検体採取を確実にを行うためにも、穿刺吸引生検法 (fine-needle aspiration biopsy: FNAB) はその選択肢の一つとして考慮されて良い。本法は、その安全性、簡便性、迅速性、診断の信頼性、そして、検体採取の確実性など様々な面で、深在性の腫瘍

性病変の生検において、従来の組織生検法より優れた生検法として高い評価を得ている^{15,16)}。頭頸部領域の腫瘍性病変に対し極めて有用との意見もあり¹⁷⁾、今後積極的に適用すべきと考えられた。

結 語

今回私達は、他医院での切開処置後に急速な増大を示し、臨床的に悪性が疑われ、診断に苦慮した硬口蓋神経鞘腫の1例を経験したのでその概要を報告した。本論文の要旨は、第25回(社)日本口腔外科学会北日本地方会(平成11年5月20日～21日、新潟市)において発表した。

引 用 文 献

- 1) Bruce, K. W. : Solitary neurofibroma (neurilemmoma, schwannoma) of the oral cavity. *OS OM OP* 7 : 1150-1159, 1954.
- 2) Kragh, L. V., et al. : Benign and malignant neurilemmomas of the head and neck. *Surg Gynec Obst* 111 : 211, 1960.
- 3) 石川 悟朗, 秋吉 正豊 : 口腔病理学 II. 589-591, 740-758, 永末書店, 京都, 東京, 1970.
- 4) Gallo, W. J., Moss, M., et al. : Neurilemmoma : review of the literature and report of five cases. *J. Oral. Surg*, 35 : 235-236, 1977.
- 5) 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(2) : 250-252, 1955.
- 6) 和田 好弘, 佐藤 大三, 他 : 口蓋, 口腔底に発生した神経鞘腫の3例. *耳鼻臨床*, 80 : 4. 591-598, 1987.
- 7) 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.
- 8) 松田 登, 四分 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.
- 9) 福間 公介, 野々村 徹也, 他 : 硬口蓋に発生した *Neurinom* の1例. *口科誌*, 11 : 196-199, 1962.
- 10) 吉原 俊雄 : 硬口蓋の腫脹. *耳喉頭頸*, 増刊号, 66 : 62-68, 1994.
- 11) 多田 信平, 荒木 力 : 画像診断 (別冊). 新編/誰にもわかる MRI. 42-86, 秀潤社, 東京, 1995.
- 12) 尾田 充孝, 西方 聡, 他 : 口蓋部腫瘤の臨床的検討. *日口外誌*, 41 : 1047-1050, 1995.
- 13) 赤澤 恵理子, 成田 七美, 他 : 口蓋に発生した多形性腺腫の2例. *東女医大誌*, 64 : 250-253, 1994.
- 14) Munakata R, Cheng J, et al. : Spindle cell carcinoma of the gingiva : report of an autopsy case. *J Oral Pathol Med*, 27 : 180-184, 1998.
- 15) 吉川 和彦, 曾和 融生, 他 : 穿刺吸引細胞診. *外科治療*, 74 : 683-686, 1996.
- 16) 馬場 紀行, 菅野 隆行, 他 : 針生検法. *外科治療*, 74 : 687-690, 1996.
- 17) 林崎 勝武, 角南 慈子, 他 : 穿刺吸引生検法. *癌の臨床*, 44 : 1199-1206, 1998.