

原 著

被膜間摘出術を施行した 副咽頭間隙神経鞘腫の検討

嶋根 俊和^{*1,2,3)} 江川 峻哉^{1,2,3)} 櫛橋 幸民^{1,2,3)}
油井 健史²⁾ 工藤 建人²⁾ 矢野 真衣²⁾
新井 佐和²⁾ 宇留間周平²⁾ 甘利 泰伸²⁾
池田賢一郎^{1,2,3)}

抄録：副咽頭間隙は、視野やワーキングスペースの面から手術操作に制限があるばかりではなく、重要血管、神経が走行しており、腫瘍の種類、大きさ、局在などから術前の診断、治療方法の決定に苦慮することも少なくない。その中で神経鞘腫は比較的発生頻度が高い腫瘍であるが、手術に関してアプローチ方法、摘出方法など明確な基準はないのが現状である。対象は、2014年4月から2018年8月までの間に副咽頭間隙に発生した神経鞘腫に対し、被膜間摘出術を施行した5例とした。検討項目は、年齢、性別、診断契機、病悩期間、腫瘍の最大径、腫瘍の局在（茎突前区、後区）、術前診断（術前予測由来神経、穿刺吸引細胞診）と術後診断、術前症状、術後症状とした。結果として術後の神経脱落症状の発生率は、副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫より有意に高い結果であったが、永続性麻痺だけで検討すると有意差は認めず被膜間摘出術の有効性が示された。

キーワード：神経鞘腫、副咽頭間隙、被膜間摘出術、合併症

緒 言

副咽頭間隙は上方を頭蓋底、内側を咽頭側壁、外側を耳下腺、前方を内側翼突筋、後方を椎前筋、下方を舌骨で囲まれた逆円錐形の空間であり、頸部からの手術では視野やスペースの面から手術操作に制限があることは臨床によく経験する。また同部位には交感神経、迷走神経、副神経、舌下神経、舌咽神経、内頸動脈、内頸静脈など重要な神経、血管などが存在し合併症を回避するためには慎重な手術操作が必要となる。これまでにわれわれは頸部神経鞘腫に対し被膜間摘出術を行い、術後の神経脱落症状などについて報告¹⁾してきた。今回、副咽頭間隙に発生した神経鞘腫について臨床的に検討するとともに、同部位に発生した他の腫瘍や副咽頭間隙以外の頸部に発生した神経鞘腫と比較検討を行った。そし

て副咽頭間隙に発生した神経鞘腫に対する被膜間摘出術の有効性を検討したので報告する。

研究 方法

2014年4月から2018年8月までの間に副咽頭間隙に発生した神経鞘腫に対し、被膜間摘出術を施行した5例を対象とした。

検討項目は、年齢、性別、神経鞘腫の発生部位、副咽頭間隙に発生した腫瘍の種類、診断契機、病悩期間、腫瘍の最大径、腫瘍の局在（茎突前区、後区）、術前診断（術前予測由来神経、穿刺吸引細胞診）と術後診断、術前症状、術後症状とした。また本検討期間で副咽頭間隙に発生した腫瘍は11例（神経鞘腫5例、その他6例）で、神経鞘腫の手術症例は49例（副咽頭間隙5例、それ以外44例）であり比較検討をした。統計学的検討にはFisherの直接確率検定、

¹⁾ 昭和大学頭頸部腫瘍センター

²⁾ 昭和大学医学部耳鼻咽喉科学講座

³⁾ 昭和大学歯学部口腔外科学講座口腔腫瘍外科学部門

*責任著者

〔受付：2019年12月20日、受理：2020年3月24日〕

Mann-Whitney U Test を用い有意差の判定を行った。なお本研究は昭和大学における人を対象とする研究等に関する倫理委員会（医学部および医学研究科）の承認（受付番号 3064）を得て行っている。

結 果

1. 年齢・性別

年齢は 28～71 歳で平均年齢は 51.2 歳であった。性別は男性 2 例、女性 3 例であった。本検討期間で副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫では、18～71 歳で平均年齢は 48.3 歳、性別は男性 23 例、女性 21 例であった。

2. 神経鞘腫の発生部位

本検討期間で神経鞘腫の手術症例は 49 例で、副咽頭間隙に発生した腫瘍が 5 例（10.2%）、副咽頭間隙以外の頸部に発生したのが 44 例（89.8%）であった。

3. 副咽頭間隙に発生した腫瘍の種類

本検討期間で副咽頭間隙に発生した腫瘍は 11 例

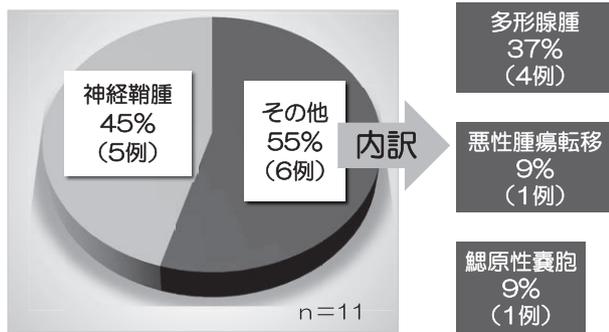


図 1 副咽頭間隙に発生した腫瘍の種類

であった。神経鞘腫が 5 例（45%）、神経鞘腫以外の腫瘍は 6 例（55%）であり、その内訳は、多形腺腫 4 例、嗅原性嚢胞 1 例、悪性腫瘍の転移 1 例であった（図 1）。

4. 診断契機

脳 MRI 撮影で偶発的に発見されたものが 3 例で、頸部腫瘍を自覚したものが 2 例であった。

5. 病悩期間

4～96 か月で平均 43.4 か月、中央値 12 か月であった。本検討期間で副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫では 3～145 か月で平均 24.4 か月、中央値 9 か月であった。両者に統計学的有意差（ $p = 0.48$ ）は認めなかった（図 2）。

6. 腫瘍の最大径

48～75 mm で平均 58.8 mm、中央値 54 mm であった。本検討期間で副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫では 18～84 mm、平均 38.3 mm、中央値 32 mm

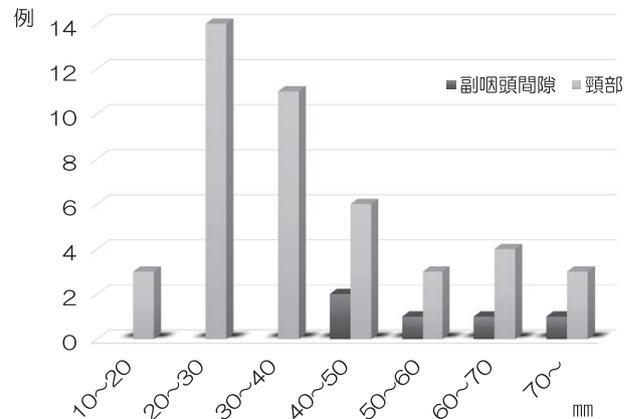


図 3 腫瘍の最大径

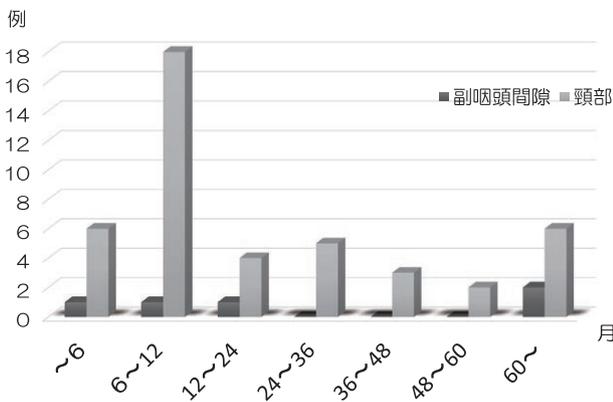


図 2 病悩期間

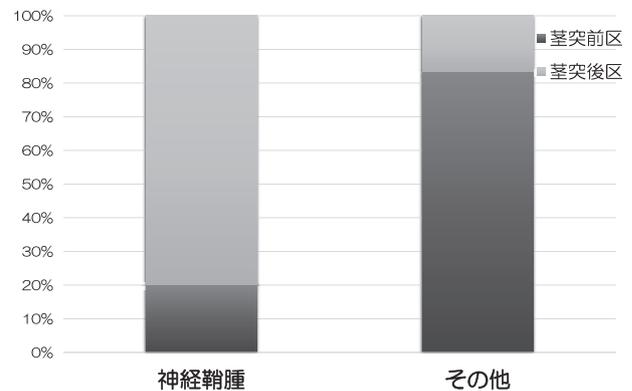


図 4 腫瘍の局在

であった。両者に統計学的有意差 ($p < 0.05$) を認め、副咽頭間隙に発生した神経鞘腫の方が大きいという結果であった (図 3)。

7. 腫瘍の局在

茎突前区 1 例 (20%, 舌神経), 茎突後区 4 例 (80%, 交感神経 3 例, 迷走神経 1 例) であった。本検討期間で副咽頭間隙に発生したその他の腫瘍も加えると, 茎突前区 6 例 (55%, 神経鞘腫 1 例, 多形腺腫 4 例, 悪性腫瘍の転移 1 例), 茎突後区 5 例 (45%, 神経鞘腫 4 例, 鰓原性嚢胞 1 例) であった (図 4)。

8. 術前予測由来神経と術後診断

術前予測が交感神経で結果が交感神経であったのが 2 例, 術前予測が迷走か交感神経でその結果が交感神経 1 例, 迷走神経 1 例, 術前予測が舌神経でその結果が舌神経 1 例であった。

9. 穿刺吸引細胞診

全例に対して穿刺吸引細胞診を行っておりその結果は, 「正常あるいは良性」が 2 例 (40%), 「紡錘形細胞を認める」が 1 例 (20%), 「材料不適」が 2 例 (40%) であった。

10. 術前症状

「あり」が 1 例 (20%) で交感神経由来の腫瘍でホルネル徴候を認め, 「なし」が 4 例 (80%) であった。本検討期間で副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫では, 「あり」が 11 例 (25%), 「なし」が 33 例 (75%) であった (図 5)。

11. 術後症状

「永続性麻痺」が 1 例 (20%) で術前から症状を認めていた交感神経由来の腫瘍であり, 「一過性麻痺」が 4 例 (80%) であった。本検討期間で副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫では, 「永続性麻痺」

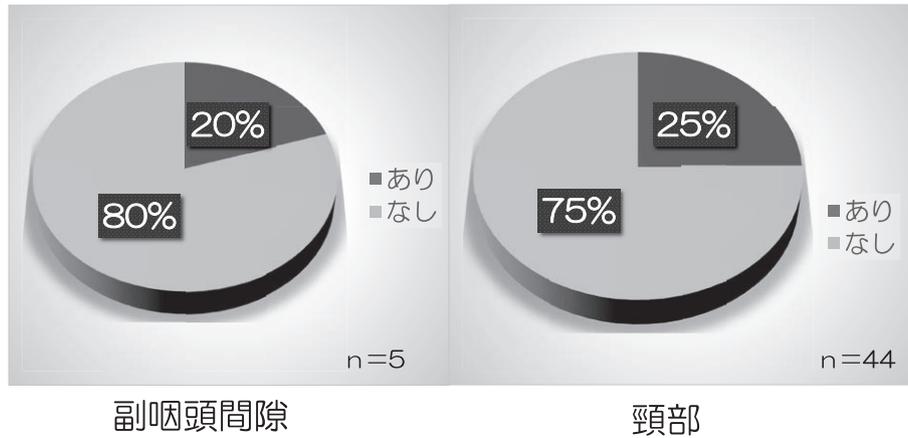


図 5 術前症状

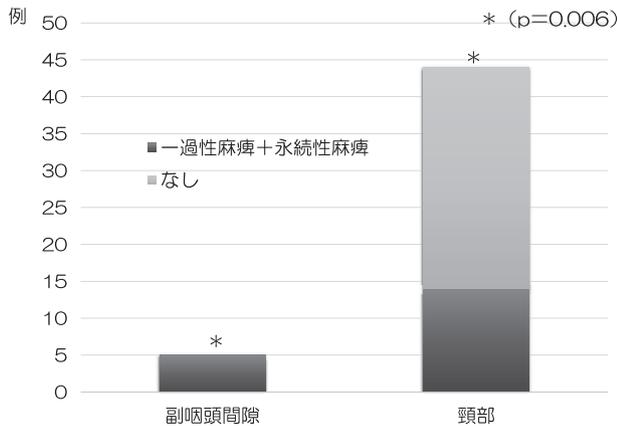


図 6 術後症状 (なし: 一過性麻痺+永続性麻痺)

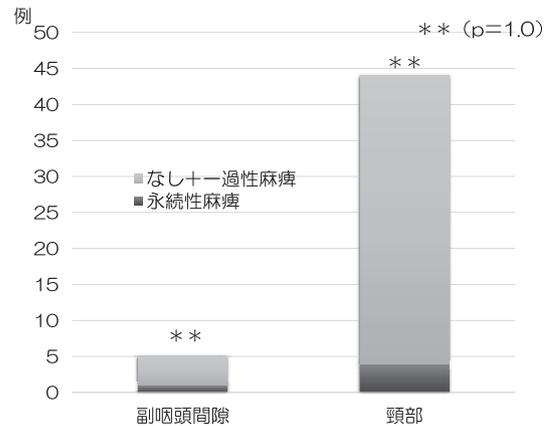


図 7 術後症状 (一過性麻痺+なし: 永続性麻痺)

が4例(9.1%)で、その内訳は交感神経由来が1例、迷走神経由来が2例、頸神経由来が1例であった。「一過性麻痺」が10例(22.7%)で、その内訳は迷走神経由来が3例、交感神経由来が3例、腕神経叢由来が2例、顔面神経由来が1例、頸神経由来が1例であり、「なし」が30例(68.2%)であった。「一過性麻痺」と「永続性麻痺」を加えた場合、副咽頭間隙に発生した方が有意($p = 0.006$)に術後神経脱落症状を呈しやすい結果であった(図6)。「一過性麻痺」と「なし」を加え「永続性麻痺」と比較し検討すると有意差は($p = 1.0$)認めなかった(図7)。

考 察

副咽頭間隙に発生する腫瘍は、頭頸部腫瘍の約0.5%の発生率^{2,3)}で比較的稀な腫瘍であり、臨床的特徴や腫瘍の種類、合併症、手術法などが報告^{4,5)}されている。また同部位は解剖学的に重要血管、神経が走行しているだけではなく、腫瘍の種類や大きさ、局在などから術前の診断、治療方法の決定に苦慮することも少なくない。特に副咽頭間隙に発生した神経鞘腫の手術に関しては、アプローチ法、摘出方法など明確な基準がないのが現状である。今回、副咽頭間隙に発生した神経鞘腫について臨床的に検討するとともに、同部位に発生した他の腫瘍や副咽頭間隙以外の頸部に発生した神経鞘腫と比較検討を行った。そして副咽頭間隙に発生した神経鞘腫に対する被膜間摘出術の有効性を検討した。

1. 年齢・性別

年齢、性別に関して男女差はなく、30～50歳代に多いというこれまでの報告⁶⁾と同様であり、本検討期間の副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫とも差は認めなかった。

2. 神経鞘腫の発生部位

本検討期間において神経鞘腫の手術症例は49例で副咽頭間隙が5例(10.2%)、それ以外が44例(89.8%)であった。頭頸部に発生する神経鞘腫のうち副咽頭間隙に発生する割合の報告は少なく、多くが頸部に発生する神経鞘腫に含まれているか、または副咽頭間隙単独での報告⁵⁾になっているものが多い。

3. 副咽頭間隙に発生した腫瘍の種類

副咽頭間隙に発生する腫瘍は、耳下腺深葉由来の腫瘍、神経鞘腫などの良性腫瘍が多く、良性腫瘍が

75～90.8%、そのうち神経鞘腫が23.3～42.1%、多形腺腫が29.2～45.6%で、悪性腫瘍が9.2～25%と報告^{4,7)}されている。今回の検討では良性腫瘍が90.9%、そのうち神経鞘腫が5例(45.5%)、多形腺腫が4例(36.4%)で、悪性腫瘍が9.1%であり神経鞘腫症例がやや多いがこれまでの報告^{4,7)}と同程度であった。

4. 診断契機

副咽頭間隙に発生した腫瘍の診断契機としては、頸部腫瘍が最も多く、その他口腔、咽頭の腫脹、頸部違和感、画像検査で偶発的に発見などが報告⁶⁾されている。今回の検討でも同様で、他疾患の精査中にMRIで偶発的に発見されたものと頸部腫瘍の自覚であった。

5. 病脳期間

病脳期間は4～96か月で平均43.4か月、中央値12か月であり、副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫では3～145か月で平均24.4か月、中央値9か月であったが両者に統計学的有意差は認めなかった。 $(p = 0.48)$ 神経鞘腫がどの部位で発生しても術後の神経脱落症状を回避する目的や増大が遅いため診断後に経過観察を選択している症例が多かったためと考えられた。

6. 腫瘍の最大径

最大径に関して副咽頭間隙に発生する神経鞘腫では、それ以外に発生する神経鞘腫よりも有意に大きい結果であった($p < 0.05$)。副咽頭間隙に発生し頸部腫瘍を自覚するまで増大している例や偶発的に見つかった症例が多いことや、頸部と比較して腫瘍の増大に対して自覚症状が乏しいことも原因として考えられた。

7. 腫瘍の局在

腫瘍の局在に関して神経鞘腫は80%が茎突後区に発生していた。これまでも神経鞘腫は57.1～87.5%が茎突後区に発生していたと報告^{4,6)}されている。

8. 術前予測由来神経と術後診断

術前の予測由来神経に関して頸部では迷走神経、交感神経、副神経など由来神経を血管の位置などで推測することが可能であったが、副咽頭間隙ではこれらの神経が集まって密集しているため推測が困難な場合も多い。CT、MRI画像から神経鞘腫であることを推測しても由来神経まで確定することは困難

であるとの報告⁷⁾もあり、当センターでは複数の由来神経の可能性を伝え手術を行っているのが現状である。本検討でも術前に由来神経を確定できたのは3例(60%)で、複数の神経を想定し術中に確定したものが2例(40%)であった。

9. 穿刺吸引細胞診

副咽頭間隙に発生した腫瘍への穿刺吸引細胞診は、距離的な問題や重要血管が存在することなど穿刺が困難な場合が少なくない。穿刺を行ったとしても正診率は低く60～80%程度とも報告^{5,8,9)}されている。また神経鞘腫は腫瘍の性質上、間質が多く穿刺吸引細胞診で診断しにくいことが知られている¹⁰⁾。紡錘形細胞が採取されれば診断の一助にはなるが、他の腫瘍でも紡錘形細胞を認めることもあり注意が必要である。しかし神経鞘腫と診断がつかなくても神経鞘腫以外の腫瘍の可能性を知ることができるため有用な検査である。今回の検討でも「正常あるいは良性」が2例、「紡錘形細胞を認める」が1例、「材料不適」が2例であり、紡錘形細胞が採取できたのは1例(20%)のみであった。

10. 術前症状

術前症状を認めた症例は、副咽頭間隙、それ以外にも20%程度で発生率は部位による差は認められなかった。これまでに術前症状は由来神経に起因し、頸神経、腕神経叢由来の神経鞘腫が生じやすいと報告¹¹⁾されている。

11. 術後症状

術後症状の「永続性麻痺」に関して、副咽頭間隙に発生した腫瘍は20%、副咽頭間隙以外に発生した腫瘍では9.1%、「一過性麻痺」ではそれぞれ80%、22.7%であった。両者を合わせた「術後麻痺」は、それぞれ100%、31.8%で副咽頭間隙に発生した場合が有意に術後の神経脱落症状を呈しやすい結果であった。(p = 0.006)副咽頭間隙に発生した神経鞘腫の方が術後神経脱落症状の発生率が高いが、「一過性麻痺」と「なし」を加え「永続性麻痺」と検討すると有意差は(p = 1.0)認めなかった。このことから副咽頭間隙に発生した神経鞘腫でも被膜間摘出術を行うことで回復する可能性があり、全摘出術ではなく、神経機能温存のために被膜間摘出術を行っていくべきと考える。

副咽頭間隙に発生する腫瘍のうち神経鞘腫は比較的頻度が高いことになるが、その手術方法に関して

アプローチ法(経頸部法、経頸部耳下腺法、下顎正中離断法、下顎側方離断法)の報告^{4,6,12)}は多数存在するが、神経鞘腫自体の摘出方法(全摘出術、被膜下摘出術、被膜間摘出術)の報告¹³⁾は少ない。

アプローチ法に関し、副咽頭間隙は視野、ワーキングスペースの確保が難しいばかりではなく、重要な血管、神経が存在し、腫瘍の大きさ、種類、下顎の大きさ、頭蓋底との関係などさまざまな観点から適切なアプローチ法を選択していかなければならない。手術アプローチ法としては経頸部法、経頸部耳下腺法、下顎正中離断法、下顎側方離断法が知られている。多くの腫瘍は経頸部法で摘出が可能であると報告⁵⁾されており、腫瘍径が100mmでも摘出可能で腫瘍径のみで術式を決定することは困難との報告¹⁴⁾もある。当センターでも基本的には経頸部法で手術を行い手術操作が困難な場合には経耳下腺法を併用するようにしている。今回の症例では1例が経耳下腺法を追加しているが残りの4例は経頸部法で摘出が可能であった。

神経鞘腫自体の摘出法に関しては、全摘出術^{15,16)}、被膜下摘出術¹⁷⁾、被膜間摘出術^{1,18)}とさまざまな意見が存在している。しかし副咽頭間隙に発生した神経鞘腫の摘出法に関しては詳細が不明な報告が多い。同部位に発生した神経鞘腫は視野やワーキングスペースの問題から被膜間摘出術が行いにくく手動的に全摘出術が行われている例も多数存在する。千々和ら⁴⁾は同部位の神経鞘腫5例のうち1例は術前からの神経脱落症状が残存し、4例は術後に神経脱落症状を生じ改善例はなかったと報告している。橋本¹³⁾は被膜間摘出術を推奨し、腫瘍が大きく行えない場合でも神経温存に努め被膜下摘出術(核出術)を行うべきであると述べている。

当センターでは基本的に全例に対し被膜間摘出術を行っている。経頸部法で摘出される例も多いと報告⁵⁾されているように腫瘍の下端で由来神経を確定することが重要である。迷走神経、副神経、舌下神経は、腫瘍の尾側で神経を確認し神経を追っていけば確認は容易である。交感神経は脊柱方向から神経が発生しているため腫瘍の尾側で脊柱側を丁寧に検索する必要がある。そこで運動神経であれば神経刺激器を用いて神経上膜の切開部位を確認することが重要である。また当センターではNarrow Band Imagingを用いて腫瘍上で神経の走行を確認するこ

とと真の腫瘍被膜を確認している¹⁹⁾。この真の腫瘍被膜で剥離を進め、まず腫瘍の下端を露出させることが重要と考えている。下端を全周性に露出することで腫瘍を牽引することが可能となり明視下に摘出することが可能となる。この方法は縦隔方向に増大した神経鞘腫²⁰⁾でも有用な方法である。

これまでの報告⁶⁾でも副咽頭間隙に発生した神経鞘腫症例の年齢は比較的若い層になり、今回の検討でも51.2歳であった。平均寿命などを考慮すると生涯のうちに増大することは明らかである。これまでにわれわれは、術後に神経脱落症状が発生しやすくなる大きさや、増大速度について報告²¹⁾している。副咽頭間隙に発生した神経鞘腫に対しては、アプローチ法、神経鞘腫自体の摘出法を術前に十分検討し臨むべきである。

良性腫瘍ではあるが患者の余命、現在の腫瘍の大きさ、そして増大速度を考慮して神経症状が出現するまでの経過観察ではなく、手術プランも考慮していく必要があると考えられた。

まとめ

被膜間摘出術を施行した副咽頭間隙神経鞘腫について検討した。

術後の神経脱落症状は、副咽頭間隙以外に発生した神経鞘腫より有意に多い結果であったが、一過性麻痺となしを加え永続性麻痺と比較検討すると有意差は認めず被膜間摘出術の有効性が示された。

副咽頭間隙に発生した神経鞘腫に対しては、アプローチ法、神経鞘腫自体の摘出法を術前に十分検討し臨むべきである。

利益相反

本研究に関し開示すべき利益相反はない。

文 献

- 1) 嶋根俊和, 江川峻哉, 池田賢一郎, ほか. 被膜間摘出術を行った頸部神経鞘腫症例の検討. 頭頸部外. 2015;25:185-189.
- 2) Work WP, Hybels RL. A study of tumors of the parapharyngeal space. *Laryngoscope*. 1974; 84:1748-1755.
- 3) Batsakis JG, Sneige N. Parapharyngeal and retropharyngeal space diseases. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1989;98(4 Pt 1):320-321.

- 4) 千々和秀記, 坂本菊男, 梅野博仁, ほか. 副咽頭間隙腫瘍の臨床的検討. 耳鼻臨床. 2008; 101:383-386.
- 5) 岡本伊作, 鎌田信悦, 三浦弘規, ほか. 副咽頭間隙腫瘍76例の発生部位と病理組織の検討. 日耳鼻会報. 2013;116:27-30.
- 6) 細川誠二, 杉山健一, 岡村 純, ほか. 副咽頭間隙腫瘍の手術適応と術式に関する検討. 日耳鼻会報. 2011;114:807-813.
- 7) 四宮弘隆, 丹生健一. 副咽頭間隙腫瘍. 耳鼻・頭頸外科. 2014;86:296-301.
- 8) Zhi K, Ren W, Zhou H, *et al*. Management of parapharyngeal-space tumors. *J Oral Maxillofac Surg*. 2009;67:1239-1244.
- 9) Farrag TY, Lin FR, Koch WM, *et al*. The role of pre-operative CT-guided FNAB for parapharyngeal space tumors. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2007;136:411-414.
- 10) 木原圭一, 仲之坊学, 松永 毅, ほか. 穿刺吸引細胞診の検討. 耳鼻臨床. 1998;91:1283-1287.
- 11) 嶋根俊和. 頸部神経鞘腫手術の最前線. 昭和学会誌. 2017;77:409-414.
- 12) 吉原俊雄. 副咽頭間隙腫瘍. 頭頸部外. 2002;12: 21-26.
- 13) 橋本 省. 副咽頭間隙腫瘍. 日耳鼻会報. 2017; 120:1275-1278.
- 14) 益田宗幸, 若崎高裕, 玉江昭裕, ほか. 副咽頭間隙腫瘍に対する経頸部・経耳下腺 頸部アプローチ 7 cm以上の3例の検討. 耳鼻と臨. 2008;54:186-194.
- 15) 木田亮紀, 藤井まゆみ, 穴澤卯恭, ほか. 頸部の迷走神経鞘腫 症例報告と本邦例の集計. 耳鼻臨床. 1990;83:275-286.
- 16) Valentino J, Boggess MA, Ellis JL, *et al*. Expected neurologic outcomes for surgical treatment of cervical neurilemmomas. *Laryngoscope*. 1998;108:1009-1013.
- 17) 中溝宗永, 横島一彦, 羽田達正, ほか. 被膜内摘出術を行った耳下腺内顔面神経鞘腫例. 耳鼻臨床. 2011;104:341-346.
- 18) 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. 2007;17:91-92.
- 19) 嶋根俊和, 池田賢一郎, 櫛橋幸民, ほか. Narrow Band Imagingを応用した頸部神経鞘腫摘出術. 頭頸部外. 2017;27:211-215.
- 20) 嶋根俊和, 江川峻哉, 櫛橋幸民, ほか. 頸部迷走神経鞘腫手術症例の検討. 頭頸部外. 2015;25:29-33.
- 21) 嶋根俊和, 櫛橋幸民, 江川峻哉, ほか. 頸部神経鞘腫における手術選択時期の臨床的検討. 昭和学会誌. 2018;78:520-525.

EXAMINATION OF PARAPHARYNGEAL SPACE SCHWANNOMAS THAT
ENFORCED THE INTER-CAPSULAR RESECTION

Toshikazu SHIMANE^{*1,2,3)}, Shunya EGAWA^{1,2,3)}, Yukiomi KUSHIHASHI^{1,2,3)},
Takefumi YUI²⁾, Kento KUDO²⁾, Mai YANO²⁾,
Sawa ARAI²⁾, Shuhei URUMA²⁾, Yasunobu AMARI²⁾,
and Kenichiro IKEDA^{1,2,3)}

Abstract — Operations in the parapharyngeal space offer limited conditions based on the field of vision and working space. The important blood vessel and nerves which run through this space, often render the preoperative diagnosis troubling, due to the treatment decisions based on type, size, the localization of tumor. To date there is no clear criteria regarding the approach method and extraction method for schwannoma surgery of this site. The subjects were five cases that underwent the inter-capsular resection for a schwannoma in the parapharyngeal space from April 2014 to August 2018. The examination details were the following: tumor dimension, localization, preoperative diagnosis of tumor, preoperative symptom (s), postoperative symptom (s), duration of symptoms, age, sex, a diagnosis opportunity. As for schwannoma that occurred in the parapharyngeal space, there was a significant number of postoperative neurologic deficiency symptoms, but because the significant difference was absent when only permanent paralysis was examined, the efficacy of the inter-capsular resection was effective.

Key words: schwannoma, parapharyngeal space, inter-capsular resection, complication

[Received December 20, 2019 : Accepted March 24, 2020]

¹⁾Showa University Head and Neck Oncology Center

²⁾Department of Otorhinolaryngology, Showa University School of Medicine

³⁾Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Oral Oncology, Showa University School of Dentistry

* To whom corresponding should be addressed