上顎洞に発生した嚢胞性リンパ管腫の2例

青木 暁宣¹⁾・飛嶋 大作²⁾・秋葉 正一²⁾
高橋 康輔¹⁾・伊藤 耕¹⁾・近藤 壽郎¹⁾

Two cases of cystic lymphangioma arising in the maxillary sinus

AOKI Akinobu¹⁾・TOBISHIMA Daisaku²⁾・AKIBA Masakazu²⁾
TAKAHASHI Kosuke¹⁾・ITO Ko¹⁾・KONDOH Toshirou¹⁾

Abstract: Cystic lymphangioma is a benign cystic lesion comprising an inherent malformation of a lymphatic vessel that typically arises in the head and neck by the age of 2 years. This report describes two adult patients with cystic lymphangioma in the maxillary sinus.

Case 1: A 42-year-old man was referred to our hospital because of a lesion in the left maxillary sinus. Panoramic radiography and X-ray computed tomography (CT) respectively revealed a well-defined radiopacity and a low-density lesion in the left maxillary sinus. We surgically extirpated the lesion with the patient under local intravenous anesthesia with sedation. The histopathological diagnosis was a cystic lymphangioma of the maxillary sinus. The patient has remained free of signs and symptoms for 2 years.

Case 2: A 49-year-old woman was referred to our hospital because of an unusual feeling in the left maxillary molar in December 2011. Swelling and tenderness were not evident in the left maxillary sinus or alveolar region, but panoramic radiography and X-ray CT respectively revealed a well-defined radiopacity and a low-density region in the left maxillary sinus. We surgically extirpated the lesion with the patient under general anesthesia in December 2012. The histopathological diagnosis was cystic lymphangioma of the maxillary sinus. The condition has not recurred as of 2 years after surgery.

Key words: cystic lymphangioma (嚢胞性リンパ管腫), maxillary sinus (上顎洞), mucocoele (粘液嚢胞)

緒 言

嚢胞性リンパ管腫 (cystic lymphangioma) はリンパ管の先天的形成異常とされる腫瘍性疾患である。発生部位は、頭頸部が75%と多く、頭頸部領域のなかでも、頸部が約60～70%と多い。一方、上顎洞内に発生するものはまれである。本稿では、成人の上顎洞に発生した嚢胞性リンパ管腫の2例について、その概要を報告する。

症 例 1

患 者：42歳，男性。

初 診：2006年5月。

主 訴：左側上顎洞内のX線不透過像の精査。

既往歴：4歳時に急性肝炎。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2006年4月、検診のため近在歯科医院を受診し、パノラマX線写真にて左側上顎洞にX線不透過像を認めため、当科に紹介された。

現 症：

口腔外所見：顔貌は左右対称であった。

口腔内所見：[678] 根尖相当部に違和感が認められるものの、明らかな腫脹や圧痛は認められなかった。また、[68]は生活反応を認め、[7]は失活歯であった。[8]には齶蝕が認められた。

¹⁾ 日本大学松戸歯学部顎顔面外科学講座
(主任：近藤壽郎教授)

²⁾ 総合病院国保旭中央病院歯科・歯科口腔外科
(主任：秋葉正一部長)

¹⁾ Department of Maxillofacial Surgery Nihon University School of Dentistry at Matsudo (Chief: Prof. KONDOH Toshirou)

²⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery Asahi General Hospital (Chief: Dr. AKIBA Masakazu)

受付日：2016年2月18日

採択日：2017年10月31日

画像所見：

パノラマ X 線写真：左側上顎洞内に [6 7 8] 根尖相当部と近接した境界明瞭な X 線不透過性の亢進像を認めた (写真 1)。

CT 写真：左側上顎洞内に [6 7] 根尖部と連続する 32×32×28mm 大の境界明瞭な類円形の低濃度領域を認めた (写真 2a, b)。

臨床検査所見：血液検査にて異常は認められなかった。

臨床診断：左側上顎洞粘液嚢胞。

処置および経過：[7] 感染根管治療と [8] 抜歯を行った後も違和感が消失しなかったため、患者と相談して手術を行うことにした。2006 年 9 月、静脈内鎮静下に病変の摘出を施行した。病変の被膜はきわめて菲薄で軟らかく、表面は平滑であり、穿刺にて黄色透明の漿液性内容を約 6 mL 吸引できた。洞粘膜と病変は大部分が剥離容易であった。しかし、一部剥離困難な箇所が存在したため、病変は洞粘膜が一部付着した状態での摘出となった (写真 3a, b)。病変部と近接する歯の根尖部は上顎骨によって境界されていた。術後 2 年の経過において再発は認めていない。2008 年 10 月終診とした。

病理組織学所見：内腔面を扁平な核を有する一層の内皮細胞で被覆された大小の管腔が多数みられ、うち 1 つが嚢胞状に著明に拡張していた。周囲の間質結合組織には、場所により、内腔に赤血球を含有する毛細血管の増生、軽度のリンパ球浸潤、線維芽細胞の増生、二層性配列を示す洞底腺の導管などが観察され、これらが嚢胞構造の薄い壁を構成していた。また副鼻腔側表面には多列線毛円柱上皮の配列が観察された (写真 4a, b)。

病理組織学的診断：嚢胞性リンパ管腫。

症 例 2

患 者：49 歳、女性。

初 診：2011 年 12 月。

主 訴：左側臼歯部の違和感および左側上顎洞内の X 線不透過像の精査。

既往歴：15 歳；急性虫垂炎。

35 歳；股関節形成不全。

45 歳；高血圧、子宮筋腫。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：10 年前から鼻汁と鼻閉感を自覚し、近在耳鼻咽喉科を受診した。2011 年 4 月頃より左側上顎臼歯部の違和感を認め近在歯科医院を受診した。[6] は生活反応が認められ、[5] の感染根管治療を開始したが症状は改善せず、パノラマ X 線写真にて左側上顎洞内に X 線不透過像を認めたため当科に紹介された。

現 症：

口腔外所見：顔貌は左右対称で、左側頬部の違和感を自覚しているが、同部の腫脹や圧痛は認められなかった。鼻汁および鼻閉感を認めた。

口腔内所見：左側上顎歯槽部の腫脹や圧痛は認められなかった。

画像所見：

パノラマ X 線写真：左側上顎洞に [6] 根尖部と近接する境界明瞭な不透過性の亢進像を認めた (写真 5)。

CT 写真：左側上顎洞内に [6] 根尖部と連続する 23×20×17mm 大の境界明瞭な類円形の低濃度領域を認めた (写真 6a, b)。

臨床検査所見：血液検査にて異常を認めなかった。

臨床診断：左側上顎洞粘液嚢胞。

処置および経過：臨床症状を認めたために患者と十分相談し、2012 年 2 月、全身麻酔下に病変の摘出術を施行した。内容液は透明な淡黄色であった。上顎洞前壁部の骨吸収は認められなかった。病変と上顎洞粘膜は一部癒着していた。病変は大部分が剥離容易であった。しかし、剥離困難な箇所が存在したため、一部洞粘膜を付着した状態で病変を摘出した (写真 7a, b)。術後より左側頬部の違和感は消失し、現在術後 2 年が経過しているが再発は認められない。

病理組織学所見：多列線毛円柱上皮により被覆された上顎洞粘膜を認めた。壁内にはリンパ管の拡張を認めた。リンパ管内皮細胞の腫大や乳頭状増殖、異型性は認められなかった (写真 8)。

病理組織学的診断：嚢胞性リンパ管腫。

考 察

嚢胞性リンパ管腫は、リンパ管構造の発生学的な異常による先天的形態異常と定義されており^{1,2)}、近年、形態学的に大小不同の嚢胞性病変が混合した奇形であると報告されている^{1,3)}。発生頻度には性差がなく、新生児や乳児に認められることが多く、そのほとんどが 2 歳までに出現している⁴⁻⁶⁾。そのため、嚢胞性リンパ管腫は、胎生期におけるリンパチャンネルの先天異常が原因と考えられており⁷⁾、成人で発見・自覚する報告もみられる^{8,9)}。

嚢胞性リンパ管腫は、外傷や炎症および上気道の感染等に関連した副鼻腔炎に併発して発症することがあり^{5,8,10)}、摘出されたリンパ管腫の 15.8% は病変周囲に炎症所見を認め、12.6% に嚢胞内出血を認めるとの報告もある⁵⁾。これに関連した症状として、自験例 1 では、[7] 慢性根尖性歯周炎が上顎洞に近接して認められ、自験例 2 では 10 年以上にわたる鼻閉、鼻漏等の慢性副鼻腔炎症状があった。

嚢胞性リンパ管腫はほぼ全身的に発生するが⁵⁾、好発部位としては頭頸部が 75%、腋窩部が約 20%、縦隔、後腹膜、

写真1 パノラマX線写真
左側上顎洞内に類円形の不透過像を認める。

写真5 パノラマX線写真
[6] 根尖部付近に境界明瞭な不透過像を認める。

写真2 CT-X線写真 (a: 水平断 b: 冠状断)
左側上顎洞底部に境界明瞭な類円形の低濃度領域を認める。

写真6 CT-X線写真 (a: 水平断 b: 冠状断)
左側上顎洞に境界明瞭な類円形の不透過像を認める。

骨盤および鼠径部などが約5%と報告されている^{2, 8, 11)}。頭頸部領域では、頸部が約60~70%と多く、上顎洞内に発生した例は、国内外でわれわれが渉猟したなかでは8例とまれであった^{12~15)}。

写真3 症例1 術中および摘出標本写真

a: 上顎洞内に球状で表面菲薄な病変を認める。
b: 摘出時, 病変は一部破綻している。

写真7 症例2 術中および摘出標本写真

嚢胞表層は菲薄で軟らかく表面は平滑であった。

写真4 病理組織像 (HE 染色, a: ×20 b: ×400)

多列線毛円柱上皮が病変部を被覆しており, 上皮直下に扁平な核を有する一層の内皮細胞を認め, 嚢胞腔を形成している。4bは4aの枠内の拡大図である。

写真8 病理組織像 (HE 染色, ×400)

多列線毛円柱上皮により被覆されている嚢胞状構築で, 上皮直下にはリンパ管の拡張を認める。

鑑別すべき疾患としては, 脂肪腫, 血管腫, 類皮嚢胞等が挙げられている^{5, 16)}。上顎洞内に発生した場合, 画像所見上では粘液貯留嚢胞との鑑別は困難で, 臨床症状の出現は少なく, 経過観察のみとなることが多い。本報告においては, 2例ともに上顎洞粘液嚢胞と診断したが, 臨床症状および患者の希望を考慮し, 外科的摘出術を施行した。病

理組織学的診断は2例とも嚢胞性リンパ管腫の診断であった。しかし、本報告例においても鼻汁および鼻閉感などの臨床症状や副鼻腔炎などの現病歴がなければ、粘液嚢胞と臨床診断し、手術は行わなかった可能性が高い。あくまでも上顎洞粘液嚢胞に関しては、本来経過観察とすべきであると考えている。

リンパ管腫は、頸部など軟組織に発症した場合には、穿刺吸引による細胞診や組織診も可能となるが、穿刺時に血液が混入した場合には、静脈奇形との鑑別が必要である^{1,16)}。また、上顎洞内では臨床的に本疾患を疑うことが難しく、穿刺吸引や開放生検を術前に施行している報告例はなかった。

リンパ管腫の確定診断には、D2-40などのリンパ管マーカーの免疫組織化学染色が有用とされている¹⁷⁾。自験例でもD2-40の免疫組織化学染色を行ったが、2例ともにD2-40陰性であった。堀ら¹⁷⁾は嚢胞性リンパ管腫の場合、D2-40が陰性であっても、血管腫と形態学的に大きく異なることがあると言われている。自験例も組織学的に血管腫とは明らかに異なること、血管内皮マーカーであるCD-31が陰性であったことから、リンパ管腫と判断した。

本疾患は、一般的に自然治癒は期待し得ないため、放置すれば上顎洞炎を併発する可能性があり、また増大する可能性があることが報告されている⁷⁾。過去には、上顎洞に生じたリンパ管腫を経過観察したことで著しい骨破壊像を認め周囲組織に拡大、波及した症例も報告されていることから、外科的摘出が適応と考えられる¹⁵⁾。嚢胞性リンパ管腫は、筋肉、血管、神経および他の組織に対して侵襲的に増殖および発育する²⁾。治療法としては、小児期であればOK-432や高張ブドウ糖液などの硬化療法が多く用いられる^{7,18)}。一方、成人では小児に比べて被膜に覆われ剥離が容易であるため、手術療法が第一選択となる⁷⁾。しかし嚢胞性リンパ管腫は周囲組織に浸潤しやすく、また摘出時に病変が残存すると10～15%の割合で再発すると言われている⁸⁾。自験2例はともに、病変と上顎洞粘膜の剥離が困難な箇所があり、一部正常上顎洞粘膜とともに一塊に摘出した。2年間の経過観察下では再発は認められなかったことから、病変摘出時に正常洞粘膜を一部付着したことが好結果をもたらしたものと考えられた。

結 語

今回われわれは、上顎洞内に発症した成人の嚢胞性リンパ管腫2例を経験したのでその概要を報告するとともに、治療法について若干の文献的考察を加えた。

謝辞

稿を終えるにあたり、自験例の病理組織学的診断に関して御教示を賜りました総合病院国保旭中央病院臨床病理科 部長 鈴木良夫先生に深謝致します。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引 用 文 献

- 1) Wassef M, Blei F, et al : Vascular anomalies classification: recommendations from the international society for the study of vascular anomalies, Pediatrics, ISSVA Board and Scientific Committee, e203-214, 2015.
- 2) 坂下英明, 田中章夫, 他 : 腫瘍・腫瘍類似疾患. 内山健志, 近藤壽郎, 他 編著 ; サクシント口腔外科学. 第3版, 学研書院, 東京, 2011, 214-248頁.
- 3) Amodeo I, Cavallaro G, et al : Abdominal cystic lymphangioma in a term newborn: A case report and update of new treatments. Medicine Milan 96: e5984, 2017.
- 4) Gross RE : The surgery of infancy and childhood. WB Saunders, Philadelphia, 960, 1953.
- 5) 岩井正行, 大木淳一, 他 : 頬部に発生した嚢胞性リンパ管腫の1例. 日口外誌 37: 85-89, 1991.
- 6) Regezi JA, Kerr DA et al : Odontogenic tumors: Analysis of 706 cases. J Oral Surg 36: 771-778, 1978.
- 7) 田中眞也, 重松久夫, 他 : 成人の顎下部に発症した嚢胞性リンパ管腫の1例. 日口外誌 50: 33-36, 2004.
- 8) 古田凱亮, 安藤幸史, 他 : 成人にみられた嚢胞性リンパ管腫の2例. 外科 49: 290-294, 1987.
- 9) 佐藤泰則, 埜口五十雄, 他 : 成人頸部に発症した嚢胞性リンパ管腫の1例. 日口診誌 4: 439-444, 1991.
- 10) 平海晴一, 森田武志, 他 : 成人発症した多発性頸部嚢胞状リンパ管腫例. 耳鼻臨床 93: 147-150, 2000.
- 11) Bhattacharyya NC, Yadav K, et al : Lymphangiomas in children. Aust N Z J Surg 51: 296-300, 1981.
- 12) Hudson JW and Meszarous EJ : Submucosal lymphangioma of the maxillary sinus. J Oral Maxillofac Surg 61: 390-392, 2003.
- 13) Drut R and Zuccaro G : Massive Osteolysis of skull bones secondary to lymphangioma of paranasal sinuses and mastoid sinus: report of two cases in children. Pediatr Dev Pathol 4: 501-504, 2001.
- 14) Sangeetha N, Ramkumar, et al : Lymphangioma of the maxillary sinus- a rare case report. OMPJ 4: 372-375, 2013.
- 15) 折山 真, 柳澤高道, 他 : 上顎洞に生じたリンパ管腫の1例. 日口外誌 40: 330, 1994.
- 16) 吉田凱亮, 安藤幸史, 他 : 成人にみられた嚢腫性リンパ管腫の2例. 外科 49: 290-294, 1987.
- 17) 堀 哲雄, 川口 庸, 他 : 多発性肺嚢胞性リンパ管腫の1例. 日呼外会誌 25: 527-32, 2011.
- 18) 谷尾和彦, 八尾正己, 他 : 嚢胞性リンパ管腫の1例 OK-432の局注療法とチンキャップの応用. 日口外誌 39: 94-96, 1993.