7歳女児に認めた鼻歯槽嚢胞の1例

立津政晴¹⁾・澤田茂樹²⁾・狩野岳史¹⁾
伊禮充孝³⁾・上田剛生³⁾・新垣敬一³⁾

A case of nasopalveolar cyst in a 7-year-old girl

TATETSU Masaharu¹⁾・SAWADA Shigeki²⁾・KANO Takeshi¹⁾
IREI Mitsutaka³⁾・UEDA Gosei³⁾・ARAKAKI Keiichi³⁾

Abstract: Nasopalveolar cysts account for 2.5% of all non-odontogenic cysts and are often found in adults. We describe our experience with a nasopalveolar cyst in a young patient, a 7-year-old girl, who had consulted her local dentist after noticing swelling in the right nasal alar region approximately 2 months before consulting our department. After no lesion had been initially detected on panoramic radiography, the girl visited our department and requested in-depth examination and treatment. Computed tomography (CT) revealed a slight dish-shaped depression in the alveolar bone in contact with a lesion. T2-weighted magnetic resonance imaging showed a shadow with distinct margins and interior uniform high signal intensity, measuring approximately 18 × 14 × 12 mm and extending from the labio-alveolar region identified on computed tomography to the lower region of the right piriform aperture. Cystectomy was performed with the patient under general anesthesia based on a clinical diagnosis of a nasopalveolar cyst. The fluid of the cyst was liquid gray to pale yellow and slightly pus-like. Histopathological examination revealed a cyst enveloped in what appeared to be columnar epithelium or stratified squamous epithelium, and the histopathological diagnosis was a nasopalveolar cyst.

Key words: nasopalveolar cyst (鼻歯槽嚢胞), 7-year-old girl (7歳女児)

緒 言

鼻歯槽嚢胞は非歯源性嚢胞で、鼻翼基部付近の皮膚、粘膜と骨の間の軟組織にみられる発生頻度が少ない疾患である¹⁾。本嚢胞は40歳代の女性に比較的多く^{2~8)}、われわれが渉猟し得た範囲では、本邦において10歳未満の報告はない^{4~8)}。今回われわれは、7歳女児に認めた鼻歯槽嚢胞を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者: 7歳, 女児。

初 診: 2017年10月。

主 訴: 右側鼻翼基部の腫脹。

現病歴: 2017年8月、家族が患児の右側鼻翼基部の腫脹に気づき近医歯科を受診した。パノラマX線写真を撮影したが、異常が認められないため精査、加療目的に当科受診となった。

現 症:

全身所見: 身長114cm, 体重19kgで全身状態は良好であった。

口腔外所見: 右側鼻翼基部に、びまん性の腫脹がみられ、患部の皮膚や鼻腔内に異常は認めなかった。また、右側鼻前庭部にはGerber隆起が認められた。

口腔内所見: CBA相当肉歯移行部は腫脹しており、触診にて粘膜下に弾性軟で小指頭大の腫瘤が触知できた。可動性や圧痛は認めなかった。上顎前歯部に齲蝕はなく、歯科治療痕も認められなかった。

画像所見:

パノラマX線所見: 上顎前歯部はすべて乳歯で、AAの

¹⁾ 沖縄県立宮古病院歯科口腔外科
(主任: 立津政晴医長)

²⁾ 沖縄県立北部病院歯科口腔外科
(主任: 澤田茂樹医長)

³⁾ 沖縄県立中部病院歯科口腔外科
(主任: 新垣敬一部長)

¹⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Okinawa Prefectural Miyako Hospital (Chief: Dr. TATETSU Masaharu)

²⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Okinawa Prefectural Hokubu Hospital (Chief: Dr. SAWADA Shigeki)

³⁾ Department of Dentistry and Oral Surgery, Okinawa Prefectural Cyubu Hospital (Chief: Dr. ARAKAKI Keiichi)

受付日: 2017年12月1日

採択日: 2019年2月26日

写真1 初診時パノラマX線写真
顎骨内に囊胞様所見は認められない。

歯根は1/2程度、B|Bの歯根には1/4程度の歯根吸収がみられた(写真1)。

CT所見；上顎骨内に囊胞様透過像はなく、病変が接する右側上顎歯槽部の骨表面がごく軽度皿状に陥凹していた(写真2A, B)。

MRI所見；右側鼻翼基部に18×14×12mm大、T1強調画像で低信号、T2強調画像にて境界明瞭で内部が均一な高信号を示す陰影像を認めた(写真3A～F)。T2強調画像の矢状断で、病変が鼻腔粘膜と連続しているようにみえた(写真3C)。

臨床診断：右側鼻歯槽囊胞。

処置および経過：患児は右側鼻翼基部の腫脹を自覚後、その違和感から鼻腔内を頻回に触るようになり、鼻出血を繰り返していた。そのため手術までの約1週間、抗菌薬内服による消炎を行った。2017年11月、全身麻酔下での摘出術を行った。DCBA|A相当の歯肉唇移行部に粘膜切開を加え、囊胞壁を確認後、周囲組織と鈍的に剥離した。囊胞壁は厚みがあり、周囲組織からの剥離は容易であった。囊胞の全摘出を図ったが、一部に鼻腔粘膜と囊胞壁の癒着を認めた(写真4)。癒着部分は可能な限り剥離し、剥離が難しい部位は鼻腔粘膜をつけて摘出した。囊胞と接する骨面は皿状に軽度陥凹していた。粘膜縫合にて閉創し、手術終了とした。

摘出標本所見：表面平滑な赤褐色の14×8×6mm大の囊胞で、内容液は灰白色から淡黄色の膿汁様であった。

病理組織学的所見：囊胞壁は、円柱上皮ないし重層扁平上皮で覆われていた(写真5)。

病理組織学的診断：鼻歯槽囊胞。

考 察

本囊胞の発生頻度については、顔面領域における非菌原性囊胞のうち2.5%という報告¹⁾があり、比較的頻度の少ない疾患である。名称はこれまで鼻前庭囊胞、Klestadt 囊

写真2 初診時CT画像

A：環状断；右側上顎前歯部歯槽部の骨面に、皿状の陥凹をわずかに認める(矢印)。
B：矢状断；同様の所見(矢印)。

胞、上顎粘液腺囊胞、鼻翼囊胞、歯槽外側囊胞、鼻唇囊胞とさまざま報告されている⁹⁾が、2017年WHO分類¹⁰⁾では、鼻歯槽囊胞または鼻唇囊胞という名称が用いられている。性差は女性に多く、好発年齢は40歳代^{2～9)}と言われている。本囊胞の最少年齢に関して、2017年の佐野ら⁷⁾、Iwagamiら⁸⁾による20歳代の症例がある。一方、2015年のSheikhら⁴⁾の報告にはWaldrepら¹¹⁾の4か月乳児の報告が含まれているが、1979年に石田ら⁵⁾は、Waldrepら¹¹⁾の報告に言及したうえで、欧米での最年少は12歳で、本邦では16歳であるとしている。このように、本邦において10歳未満の報告は渉猟できず、自験例は本邦において最年少の報告と考えられる。

本囊胞の発生機序には、球状突起、外側鼻突起、上顎突起に外胚葉が迷入して生じる「胎生期発生異常説」、鼻涙管原基の上皮遺残から生じるとする「胎生期器官残存説」、腺排泄管の貯留を原因とする「貯留囊胞説」、鼻粘膜上皮の陥

写真3 初診時MR画像

- A：環状断；T1強調画像，病変（矢印）は低信号を呈している。
 B：環状断；T2強調画像，病変（矢印）は高信号を呈している。
 C：矢状断；T1強調画像，病変（矢印）は低信号を呈している。
 D：矢状断；T2強調画像，病変（矢印）は鼻腔側に増大し，上顎骨に影響を受け豆状に変形している。
 鼻腔粘膜と連続性（黒三角）を認める。
 E：前頭断；T1強調画像，病変（矢印）は低信号を呈している。
 F：前頭断；T2強調画像，病変（矢印）は高信号を呈し，鼻腔側に増大し，前鼻棘の影響を受け豆状に変形している。

写真4 術中写真

全身麻酔下に嚢胞を摘出したところで、鼻腔粘膜と嚢胞の癒着を認める(矢印)。

写真5 病理組織像 (H-E 染色 × 200)

嚢胞壁は、円柱上皮または扁平上皮で裏装されている。

入によるものとする「迷入嚢胞説」など、さまざまな説がある¹²⁾。本嚢胞の発生部位から胎生期発生異常説を支持する意見¹³⁾や、発生年齢が中高年に多く、若年者に少ないことから胎生期発生異常説、胎生期器官遺残説に否定的な意見^{14, 15)}もある。一方で Parwani ら¹⁶⁾は、本嚢胞の10.6%に両側性の発生を認めることから、鼻涙管原基の上皮遺残から生じる胎生期器官残存説の可能性を指摘しており、河野¹²⁾らもその考えを支持するなど、本嚢胞の発生機序は未だ不明である。自験例の病理所見では、鼻腔粘膜と本嚢胞が癒着していた部分に、線維性結合組織と少量の炎症細胞の浸潤があるのみで、前述した本嚢胞の発生機序を

裏付けるような鼻前庭腺(貯留嚢胞説)や、鼻腔粘膜と連続する上皮(迷入嚢胞説)などの組織学的所見を認めることはできなかった。Waldrep ら¹¹⁾同様、自験例も本嚢胞のなかでは頻度の少ない感染⁴⁾により発見に至ったが、本嚢胞は病悩期間が長いという特徴⁵⁾があるため感染しなければ発見に至らず、緩慢に嚢胞が増大し、腫脹を自覚するまで発見されなかった可能性は否定できない。われわれも鼻涙管原基の上皮遺残から発生した可能性を支持したい。

本嚢胞は、鼻翼基部付近の軟組織に発生する特徴があるため、パノラマ X 線写真やデンタル X 線写真等では明らかな所見は認められない。過去には診断のため嚢胞に造影剤を注入し嚢胞の位置、形状などを評価した報告^{3, 5, 6, 13)}が散見される。しかしそれらは、明瞭な画像を得られる反面、造影剤によるショックや嚢胞壁の変性¹⁴⁾、感染¹⁷⁾の可能性があるため、近年では診断に用いられることは少ない。自験例を含め、多数の報告で画像評価に用いられていたのが CT である。CT は骨組織の状態を詳細に評価できると同時に、MRI、超音波画像診断 (US) に及ばないが軟組織も評価することができる。河野¹²⁾も、本嚢胞の診断には CT のほうが MRI よりも骨組織と軟組織の境界を高いコントラストで描出できるため有用であるとしている。しかし Sato ら¹⁸⁾は、顔貌所見と CT 所見で左側鼻歯槽嚢胞を疑う症例において、MRI 所見で右側にも病変が確認されたことを報告し、MRI の有用性について述べるとともに、軟組織に発生する本嚢胞と鑑別を要する疾患として血管腫や類皮嚢胞、類表皮嚢胞、術後性上顎嚢胞、菌原性嚢胞、神経鞘腫などの良性病変や悪性腫瘍を挙げている。他にも、本嚢胞の診断に MRI を用いたとの報告があり、Tanimoto ら¹⁹⁾は、MRI は軟組織におけるコントラスト分解能が優れており、病変の特徴を把握できるため有用であるとし、さらに本嚢胞に対して造影 MRI も行い、嚢胞内部の増強効果はなく、周囲組織のみが強調されて描出されたとしている。Iida ら¹⁷⁾も、上唇に発生した神経鞘腫と本嚢胞の MRI 所見について、それぞれの MR 画像の特徴を次のように述べている。神経鞘腫、鼻歯槽嚢胞ともに T1 強調画像で低信号、T2 強調画像で高信号と類似した所見を示した。しかし、病変の形状と周囲組織との関係に違いがあり、神経鞘腫は本嚢胞よりもやや頬側にあり周囲の解剖学的構造に影響を受けることなく円形を示した。一方、大きな病変ではスカラップ状の骨吸収を伴うことがあり、鼻腔底や上顎骨などに影響を受けながら鼻腔側に広がる場合に、矢状断や環状断で豆状の所見を示すことがあるとしている。自験例の MRI 所見も同様であったことから、本嚢胞診断時に参考となる所見と考えられた。

また、軟組織評価に用いられるものに US があるが、Ocak ら²⁰⁾、Acar ら²¹⁾は、US は CT、MRI より低コストで低侵

襲な検査だが、術者の経験が重要としている。確かにUSは、金属の補綴物などが病変の近くにあっても影響を受けることなく評価できる特徴があり、病変内部の血流や液状成分の有無も確認できるが、3次元的な病変の位置や形状、周囲組織との関係性を術者の経験によらず評価できる点では、MRIのほうが有用と考えられる。いずれにしてもIidaら¹⁷⁾、Satoら¹⁸⁾の報告例のように、本嚢胞の診断にはCT、MRI、USなどの所見を総合的に評価することが重要と考えている。

結 語

今回われわれは、7歳女児の鼻唇槽嚢胞の1例を経験したので、その概要と文献的考察を加えて報告した。

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) Bhasker SN : Synosis of oral pathology. 6th Ed, Mosby Co, St Louis: 227-228, 1969.
- 2) 阿部廣幸, 片海裕明, 他 : 鼻唇嚢胞の1例と本邦34例についての検討. 口科誌 39: 151-157, 1990.
- 3) Roed-Petersen B : Nasolabial cyst, A presentation of five patients with a review of the literature. Br J Oral Surg 7: 84-95, 1969.
- 4) Sheikh AB, Chin OY, et al : Nasolabial cysts: A systematic review of 311 cases. Laryngoscope 126: 60-66, 2016.
- 5) 石田 恵, 曾田忠雄, 他 : 鼻口唇嚢胞9例の臨床的観察. 日口外誌 25: 1422-1426, 1979.
- 6) 笹倉裕一, 村田 真, 他 : 鼻唇嚢胞の2例. 日口外誌 31: 1743-1748, 1985.
- 7) 佐野大輔, 金澤輝之 : 両側鼻唇槽嚢胞の1例と本邦における文献的考察. 日口外誌 63: 587-592, 2017.
- 8) Iwagami T, Morita Y, et al : Nasolabial cyst in an elderly patient : Report of a case and literature review. OJST 7: 455-461, 2017.
- 9) 松野智宣, 萩野靖人, 他 : 両側に生じた鼻唇槽嚢胞の1例. 日口外誌 43: 742-744, 1997.
- 10) A.K.EI-Naggar, JKC Chan, et al. (eds.) WHO Classification of Head & Neck Tumours, 4th, ed. WORLD HEALTH ORGANIZATION: 2017, p234-242.
- 11) Waldrep AC Jr and Capodanno JA : Bilateral nasolabial cysts. report of case. J Oral Surg 24: 347, 1966.
- 12) 河野辰行, 池田麻美, 他 : 両側性に生じた鼻唇嚢胞の1例. 日口腔内会誌 22: 41-45, 2016.
- 13) 綿貫幸三, 高坂知節, 他 : 鼻前庭嚢胞の4例. 日耳鼻 84: 721-730, 1981.
- 14) 村田 勝, 柴田敏之, 他 : 鼻唇槽嚢胞の1例と文献的考察. 口科誌 49: 184-188, 2000.
- 15) 柴田敏之, 山下徹郎, 他 : 特異な臨床病像を呈した鼻唇槽嚢胞の2例. 日口外誌 49: 590-593, 2003.
- 16) Parwani R, Parwani S, et al : Diagnosis and management of bilateral nasolabial cysts. J Oral Maxillofac Pathol 17: 443-446, 2013.
- 17) Iida S, Aikawa T, et al : Spheric mass beneath the alar base: MR images of nasolabial cyst and schwannoma. AmJNeuroradiol 27: 1826-1829, 2006.
- 18) Sato M, Morita K, et al : Bilateral nasolabial cysts: a case report. J Med Case Rep. 2016;10:246. doi:10.1186/s13256-016-1024-2. Accessed October 13, 2018.
- 19) Tanimoto K, Kakimoto N, et al : MRI of nasoalveolar cyst : case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2005; 99: 221-224
- 20) Ali Ocak, SB Duman, et al : Nasolabial Cyst : A Case Report with Ultrasonography and Magnetic Resonance Imaging Findings Case Reports in Dentistry, Volume 2017, Article ID 4687409, 4 pages. <https://doi.org/10.1155/2017/4687409>. Accessed April 12, 2018.
- 21) Ahmet H Acar, Ümit Yolcu, et al : "Is Ultrasonography-useful in the diagnosis of nasolabial cyst?" Case Reports in Dentistry, volume 2014. Article ID678541.3pages <http://dx.doi.org/10.1155/2014/678541>. Accessed December 25, 2018.