鼻口蓋管嚢胞の一部に発現した扁平上皮癌の1例

西川正典・山本 学・田中章夫*
中田利明**・津田善造*・吉武一貞

A case of squamous cell carcinoma arising in a nasopalatine canal cyst

Masanori NISHIKAWA・Gaku YAMAMOTO・Akio TANAKA*
Toshiaki NAKATA**・Yoshizou TSUDA*・Kazusada YOSHITAKE

Abstract: Malignant tumors rarely arise in jaw cysts. We report a case of squamous cell carcinoma arising in a nasopalatine canal cyst. A 56-year old man presented with swelling in the labial gingiva at the middle of the maxilla. Oral examination showed a thumb-tip sized swelling with a smooth surface and normal color. Radiographic examination revealed a round translucent image measuring 25mm in diameter in the middle of the maxilla. This image was clearly demarcated. Under general anesthesia, ablation of the cyst was performed for a diagnosis of nasopalatine canal cyst. During operation, frozen section diagnosis was performed and revealed squamous cell carcinoma in this cyst. After operation, chemotherapy (CDDP+5-FU) and radiation treatment (50Gy) were performed. The patient has a good prognosis, with no evidence of local recurrence or metastasis.

Key words: nasopalatine canal cyst (鼻口蓋管嚢胞), squamous cell carcinoma (扁平上皮癌), intraosseous carcinoma (顎骨中心性癌)

緒 言

顎骨嚢胞から発生する顎骨中心性癌の報告は少なく、その臨床病態については不明な点も多い。今回われわれは鼻口蓋管嚢胞の一部に発現した扁平上皮癌の1例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者：56歳，男性。
初 診：平成10年5月■。
主 訴：上顎正中部有痛性腫脹。

既往歴：糖尿病。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成10年4月，上顎正中部の腫脹に気づき近医歯科を受診するも特に処置されず経過観察されていたが，増大傾向にあるため当科へ精査を目的に来科。

現 症：

全身所見：特記事項なし。

口腔外所見：上唇部にびまん性腫脹および少年期の犬による咬傷の瘢痕がある。所属リンパ節に異常は認められなかった。

口腔内所見：両側上顎中切歯，左側上顎側切歯は欠損しており同部唇側粘膜に拇指頭大の表面平滑で正常色のびまん性腫脹があり圧痛を認めた。

X線写真所見：オクルーザル，オルソパントモグラム，CTにおいて上顎正中部に直径約25mm，類円形の透過像を認めた。CT像において病変部上顎骨に粗造な面を呈する破壊はなく，唇側および口蓋側に膨隆と骨皮質の菲薄化を認めた(写真1)。

臨床検査所見：空腹時血糖が131~185mg/ml，HbA1c=6.4である他は特に異常を認めなかった。

臨床診断：鼻口蓋管嚢胞。

処置および経過：平成10年6月■全身麻酔下に嚢胞摘出術を施行。術中，上顎正中部唇側の粘膜，骨膜を切開，剥

滋賀医科大学歯科口腔外科学講座
(主任：吉武一貞教授)

*滋賀県立成人病センター歯科口腔外科
(主任：津田善造部長)

**社会保険滋賀病院歯科口腔外科
(主任：中田利明医長)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Shiga University of Medical Science (Chief: Prof.
Kazusada Yoshitake)

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Shiga Medical Center for Adult Diseases (Chief:
Dr. Yoshizou Tsuda)

**Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Shiga Hospital of Health Insurance (Chief: Dr.
Toshiaki Nakata)

受付日：平成11年10月12日

写真1 術前のCT像

矢印は上顎骨内の類円形の透過像を示している。

写真2 術後6か月の口腔内写真

腫瘍切除部の治癒は良好で周囲健全歯肉と同様の上皮化が起こっており再発の傾向は認められない。

離し、深部に現れた囊胞の剥離を試みたが囊胞壁は周囲組織と癒着しており剥離は困難であった。囊胞に割を入れたところ内部に囊胞壁に連続した弾性硬の充実性病変が認められた。囊胞の切除前に充実性病変の術中迅速病理組織検索を行ったところ扁平上皮癌であるという診断を得た。囊胞壁と内部の充実性病変を一塊として切除し、その後囊胞壁周囲の骨を骨バーにて約5mmの深さで削除し、創部を開窓とした。術後、化学療法（CDDP 120mg+5FU 1000mg/day×5日）を1コースおよび放射線療法を50Gy施行した。現在開窓部には栓塞子を兼ねた義歯を装着し経過観察中であるが再発の傾向、遠隔転移は認めていない。開窓部は周囲健全歯肉と同様に上皮化している（写真2）。

切除物の肉眼所見：囊胞壁の内面には囊胞壁に連続し腔内に突出した腫瘍部分を認めた（写真3）。

切除物の病理組織学的所見：H-E染色標本において異型性に乏しい線毛円柱上皮から扁平上皮癌への移行像が認め

写真3 切除物写真

矢印は扁平上皮癌の部分を示している。

写真4 切除物の病理組織標本（HE標本）

上の写真の矢印は扁平上皮癌への移行部を示している。下の写真は移行部の拡大像を示している。上の写真：×40 下の写真：×100

られる（写真4）。Ki-67免疫染色標本において扁平上皮癌の部位に強い陽性反応が認められ、この部位の強い増殖性を示している（写真5）。

考 察

一般に、口腔領域における癌は口腔粘膜上皮に原発するものが多く、顎骨中心性に発生することはまれである。わ

写真5 切除物の病理組織標本
(×40 Ki-67免疫組織標本)

扁平上皮癌への移行部位を示している。扁平上皮癌の部分における Ki-67抗原の強い染色性が認められる。

れわれが検索し得た過去13年間の本邦における顎骨嚢胞から発生したと考えられた癌の症例はわずか22例であった。性差はなく、年齢は15～81歳、平均49.3歳であった。部位別では下顎が上顎の約2倍の頻度で認められた。組織型は粘表皮癌が1例、残りはすべて扁平上皮癌であった。

1980年、木下ら¹⁾は「顎骨中心性癌が嚢胞上皮由来であるための要件」を報告した。その要件は1) 口腔粘膜癌の浸潤ではないこと、2) 転移性や顎骨内原発性の癌の浸潤ではないこと、3) 嚢胞性エナメル上皮腫の癌化ではないこと、4) 組織学的に正常な嚢胞上皮と扁平上皮癌との移行が示されることである。本症例においては初診時、嚢胞に隣接する口腔粘膜上皮に潰瘍形成など異常を認めず、術前CTおよび術後のGa シンチグラムなどの検索でも上顎以外の他部位に腫瘍病変を認めなかったこと、さらに、切除標本にエナメル上皮腫の組織像は認められず、嚢胞上皮の扁平上皮癌への移行が確認されたことでこの要件を満たしている。またこの嚢胞の組織由来について考察すると1992年のWHO分類²⁾では正中上顎嚢胞は鼻口蓋管嚢胞が後方に拡張したものであるとされており、胎生期の突起の癒合部に残存する上皮から発生するという見解は否定されている。今回他の報告³⁾に認められるような鼻口蓋管との連続性、鼻口蓋神経・動脈の走行は確認されなかったが、病理学的に裏層上皮は扁平上皮と線毛円柱上皮が混在したものであり、この嚢胞は鼻口蓋管由来である可能性が示唆される。また今回病理組織標本の Ki-67免疫組織染色を行った。Ki-67抗原は特に増殖相にある細胞を認識するとされており、免疫組織化学的に cell cycle 上で G₁, S, G₂, および M 期の染色体上に発現する⁴⁾。小宮山⁵⁾は腫瘍原発巣の Ki-67抗原標識率を免疫組織学的に検索することは臨床において腫瘍原発巣の生物学的な悪性度を知るうえで

有益な方法であると報告している。今回の症例では病理組織標本の扁平上皮癌の部位において強い抗原陽性反応が認められたため、今後の経過観察において注意を払う必要があると思われる。

文献的には^{6, 7)}顎骨中心性癌は術前に診断されている場合は少なく、術中あるいは術後に診断されている場合が多いとされている。また顎骨中心性癌の X 線写真像は境界が明瞭、一部不明瞭、全周不明瞭と報告者により所見が異なり⁸⁾、術前の X 線写真所見で悪性所見を得るのは難しいと思われる。本症例においても術前の口腔内所見、X 線写真所見においては悪性を疑う所見は認められなかった。顎骨嚢胞は日常臨床において頻繁に遭遇する疾患であり、そのほとんどのものは良性である。しかし本症例のような嚢胞壁における堅い腫瘤状病変の存在、著しい剥離困難などの通常と異なった所見があれば悪性腫瘍である可能性を考慮し、術中迅速病理組織検索を行いその結果に応じた適切な処置を行う必要があると考えられる。

結 語

56歳男性の鼻口蓋管嚢胞から発生したと思われる扁平上皮癌の1例を経験したのでその概要について報告した。

稿を終えるに臨み、Ki-67免疫組織染色を行うにあたって御指導いただきました本学臨床検査医学講座 岡部英俊教授、茶野徳宏博士、また病理組織診断において御指導いただきました滋賀県成人病センター病理部 武内英二医長に心より感謝いたします。

引 用 文 献

- 1) 木下 勲彦, 永田可清, 他: 下顎骨嚢胞に生じた扁平上皮癌の一例. 日口外誌 26: 180-185 1980.
- 2) Kramer, I.R.H., Pindborg, J.J., et al.: 日本口腔病理学会誌: WHO 歯原性腫瘍の組織学的分類, 第2版, 医歯薬出版, 東京, 1996, 35-36頁.
- 3) 林 孝文, 伊藤寿介, 他: 切歯管嚢胞より発生したと考えられる扁平上皮癌の1例. 歯放 33: 74-80 1993.
- 4) Giorgio, C., Michael, B., et al.: Monoclonal antibodies against recombinant parts of the Ki-67 antigen (MIB 1 and MIB 3) detect proliferating cells in microwave-processed formalin-fixed paraffin sections. J Pathol 168: 357-363 1992.
- 5) 小宮山和正: 舌癌の増殖能に関する免疫組織化学的研究: Ki-67抗原発現と組織学的悪性度との関連性について. 日口外誌 41: 179-189 1995.
- 6) 手島 渉, 荒谷恭史, 他: 歯原性嚢胞から発生したと考えられる下顎骨中心性癌の1例. 日口外誌 40: 308-310 1994.
- 7) 星 秀樹, 関山三郎, 他: 歯原性嚢胞より発生したと思われる顎骨中心性癌の1例. 日口診誌 11: 133-136 1998.
- 8) 吉野教夫, 倉林 亨, 他: 歯根嚢胞様の X 線像を呈した扁平上皮癌の一例. 歯放 30: 241-248 1990.