上顎切歯の位置異常を伴った小児の鼻口蓋管嚢胞の1例

塚本 剛一・小山 貴弘・銅前 昇平
小野 達生・目瀬 浩・佐々木 朗

A case of nasopalatine duct cyst with malposition of the incisors in a child

TSUKAMOTO Goichi · KOYAMA Takahiro · DOMAE Shohei
ONO Tatsuo · MESE Hiroshi · SASAKI Akira

Abstract: We report the case of a 6-year-old boy with a nasopalatine duct cyst. He consulted a dental clinic because of median diastema in the upper medial incisors. Radiographic examinations revealed a radiolucent area in the maxilla, extending from the nasal floor to the alveolar ridge between the medial incisors, which inclined medially. The upper lateral incisors were still impacted far from the normal position. We performed marsupialization to prevent damaging the incisor pulp. After that the lateral incisors erupted and malalignment of both incisors improved; however, the cystic cavity did not disappear completely. Extirpation of the remaining cyst followed by wound closure was performed at a secondary operation 9 months later. This case was considered to be rare because it occurred in childhood and affected the dental alignment at the time of teeth eruption.

Key words: nasopalatine duct cyst (鼻口蓋管嚢胞), incisive canal cyst (切歯管嚢胞), median diastema (正中離開), child (小児)

緒 言

鼻口蓋管嚢胞は顎骨に発生する非菌原性嚢胞で、鼻口蓋管由来と考えられている。性別では男性に多く、年齢別では30～50歳代に好発するといわれており¹⁾、小児に発生することはまれである。今回われわれは、上顎中・側切歯の位置異常を引き起こした小児の鼻口蓋管嚢胞で、術式として開窓術を選択することで、これら歯の正常位置への移動と萌出を誘導し得た症例を報告する。

症 例

患 者：6歳、男性。
初 診：2001年2月6日。
主 訴：上顎中切歯の正中離開。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：2001年2月4日、上顎中切歯の正中離開を主訴に某歯科を受診した。X線診査にて上顎骨正中部に円形透過像を指摘され、精査の目的で当科を紹介され受診した。

現 症：

全身所見：体格および栄養状態良好。

局所所見：萌出した上顎中切歯は近心傾斜の状態で5mmの離開を認め、側切歯は未萌出であった(写真1)。中切歯部唇側歯槽部は骨様膨隆を呈し、硬口蓋の正中前方部にも骨様膨隆を認めその中央は波動を触知した。

X線写真所見：X線診査において、咬合法X線写真では、口蓋の骨様膨隆の範囲とほぼ一致してX線透過像を認めた(写真2-A)。デンタルX線写真で透過像は近心傾斜により拡大した中切歯歯根間から歯槽骨頂付近にまで達していた(写真2-B)。

CT所見では病巣は鼻腔底を拳上し、上顎前方正中部に最大径25mmのX線透過像を認め(写真3-A)、CT値から内部に液性成分の貯留が示唆された。側切歯は顎骨内で著しい位置異常を呈し、中切歯と側切歯の未完成な根尖は病巣と接していた(写真3-B)。

臨床診断：鼻口蓋管嚢胞。

岡山大学大学院・医歯薬学総合研究科・歯顎口腔病態外科学分野

(主任：佐々木 朗教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Biopathological Science, Okayama University Graduate School of Medicine, Dentistry and Pharmaceutical Sciences (Chief: Prof. SASAKI Akira)

受付日：2007年1月11日

採択日：2007年5月29日

写真1 初診時（平成13年2月）の口腔内写真
口蓋の膨隆，上顎両側中切歯の近心傾斜と約5mmの
正中離開を認める。

処置および経過：摘出術の場合，隣接歯が失活する可能性を考慮し，2001年4月5日に唇側からの開窓術を施行した。術後1か月目における嚢胞腔容積は3.0mlであった。2002年12月には側切歯が萌出し，正中離開は約1mmとなった。嚢胞腔は0.2mlまで縮小したが消失しないため，X線写真より病巣と切歯根尖部との間に一層の骨が介在することを確認したうえで（写真2-C, D），2003年1月7日に残存嚢胞の摘出および開窓部の閉鎖術を施行した。11月21日のX線写真では良好な骨再生を認め，中切歯間の離開もほぼ消失し，中・側切歯列の状態は良好なものとなった（写真2-E, F）。

病理組織学的所見：2001年4月開窓時採取した病変からは線維芽細胞に富む緻密な膠原線維を認めるものの上皮組織は観察されず，確定診断には至らなかった。2003年1月手術時の摘出標本病理組織検査では，裏装上皮はほとんど消失し，変性は受けているものの数層の細胞から成る多列線毛円柱上皮（写真4A）を認め，上皮下には神経線維束も観察された（写真4B）。

病理組織学的診断：鼻口蓋管嚢胞。

考 察

鼻口蓋管嚢胞は，supernumerary nasal sinusとして1914年Meyer²⁾によって初めて報告された。別名に切歯管嚢胞（incisive canal cyst）があり，骨外性に発現すると口蓋乳頭嚢胞（cyst of the palatine papilla）と呼ばれる¹⁾。組織学的に嚢胞は重層扁平上皮や多列線毛円柱上皮あるいは両方によって裏装されている。またその結合組織内に大きな神経や血管を有することがある¹⁾。多列線毛上皮は鼻口蓋管嚢胞に特徴的なものとされるが，実際は上顎に発生する歯根

写真2 咬合法および標準X線写真

2001年2月（初診時）：

A（咬合法）；口蓋の骨様膨隆の範囲とほぼ一致して，類円形のX線透過像を認める。

B（標準法）；透過像は中切歯歯根間から歯槽骨頂付近にまで達している。

2002年12月（開窓術後20か月）：

C（咬合法），D（標準法）；中・側切歯の根尖形成が進行しているが，なお類円形のX線透過像が上顎骨内に存在する。病巣と根尖部との間に一層の骨が介在している。

2003年11月（摘出術後10か月）：

E（咬合法），F（標準法）；X線透過像はほぼ消失している。

嚢胞や含菌性嚢胞にもみられることがあり³⁾，診断においては臨床的，X線学的様態と組み合わせる必要があると思われる。本症例においては中切歯が生活歯であることから

写真3 初診時（平成13年2月）のCT像

A；病巣の上方への進展により（矢頭），反対側と比し左側鼻腔底が挙上している（矢印）。

B；上顎骨前方正中中に最大径25mmの類円形X線透過像を認める。透過像は未完成の中切歯（矢印）および側切歯（矢頭）歯根と接している。

写真4 摘出標本組織所見（HE染色，×10）。

A：開窓により変成しているものの嚢胞壁内面に多列線毛円柱上皮を認める。

B：嚢胞壁の結合組織内に神経線維（矢印）を認める。

図1 当科における鼻口蓋管嚢胞症例の診断確定時年齢および性別分布

男性44名，女性10名。平均47.1±16.0歳（平均±標準偏差）。

同歯が原因の根側性歯根嚢胞と，組織学的な観点から角化嚢胞性歯原性腫瘍および非角化性原始性嚢胞と鑑別した。

過去20年間の報告における症例数30例以上の鼻口蓋管嚢胞臨床統計では，患者の平均年齢は31～54歳でいずれも男性の占める割合が多かった^{4～7)}。当科開設以来経験した鼻口蓋管嚢胞症例は54例（男性44名，女性10名）であった。手術（開窓，生検を含む）により得られた摘出標本より組織学的に本疾患と合致した所見が得られたときの年齢は47.1±16.0歳（平均±標準偏差）と比較的高年

齢で、上記の報告と合致していた。このうち10歳未満は本症例のみで、10歳台は2名と少数であった(図1)。上記各報告の患者最少年齢は、それぞれ23⁴⁾、7⁵⁾、9⁶⁾、20歳⁷⁾であった。

Swanson ら⁶⁾は症例数334例からの分析で、パノラマX線診査が若年者にも適用されることが多くなっているにもかかわらず、10歳以下の症例が少ないことに驚くと記述している。そして年齢と嚢胞の大きさに相関はみられなかったとし、発育性疾患へ分類することに疑問を呈している⁶⁾。また嚢胞の平均径は17.1mmと比較的小さく、75%の症例が20mm以下であったことから、一般的に鼻口蓋管嚢胞は増殖能が低いと述べている⁶⁾。以上の分析から鼻口蓋管嚢胞はさまざまな年齢層に発生し、低年齢時に発生しても緩慢な発育をたどることが考えられ、10歳以下の症例数が少ない理由になりうるのではないかと思われた。

歯の偏位については、上記の臨床統計報告中、上顎切歯を有する患者数と歯の偏位を認めた患者数を記載していたのはAnneroth ら⁴⁾で、発現率を算出すると8%であった。Pevsner ら⁸⁾は鼻口蓋管嚢胞と歯根嚢胞の鑑別点として、根尖の偏位が前者に多いことを述べている。隣接歯の偏位自体はまれなものではないようであるが、著しい歯列異常に対する治療法を記載した報告は渉猟できなかった。これについては、本症例のようなケースは切歯の萌出時期と嚢胞の発生時期、部位および増殖度等の条件が重ならなければならず非常にまれであること、また上顎切歯が正常萌出した後に根離開が発生しても歯列に大きな影響をおよぼさないことが理由として考えられた。Ely ら⁹⁾は、年齢的にまれな症例として8歳の鼻口蓋管嚢胞症例を報告している。この症例では、咬合X線写真上嚢胞の最大径は20mmで、中・側切歯歯根までは達していなかった。また上顎中・側切歯の歯列不正はなく、正常に萌出していた。

治療法については、摘出閉鎖創が一般的であるが、Elliot ら¹⁰⁾は嚢胞が大きく鼻腔口腔両方に近接し骨構造が乏しい時は、同術式では術後に難治性の瘻孔形成が発現する可能性が高くなるため、開窓術も選択肢になるとしている。これに加え、本症例では中・側切歯は失活を免れ、正常部

位へ移動、萌出した。結果的に嚢胞腔が完全に消失しなかったため2次手術として摘出術が必要になったが、以上より小児の隣接歯が関連する鼻口蓋管嚢胞症例に対しては、開窓術が有効であると考えられた。

結 語

今回われわれは小児ではまれな鼻口蓋管嚢胞を経験した。小児において上顎中切歯の近心傾斜を認めるときは本疾患も念頭において鑑別診断を行う必要があると考えられた。本症例では開窓術を施行することで、中切歯の近心傾斜が改善し、顎骨内で位置異常となっていた未萌出側切歯が正常部位へ自然萌出した。

引 用 文 献

- 1) Kramer, I.R.I., Pindborg, J.J., et al.: Histopathological typing of odontogenic tumours. 2nd ed. WHO, Springer-Verlag, Berlin, 1992, p39-40.
- 2) Meyer, A.W.: A unique supernumerary paranasal sinus directory above the superior incisors. J Anat 48: 118-129 1914.
- 3) 朔 敬, 程 珺: 顎骨嚢胞の成立機序と診断の要点. 病理と臨床 19: 266-274 2001.
- 4) Anneroth, G., Hall, G., et al.: Nasopalatine duct cyst. Int J Oral and Maxillofac Surg 15: 572-580 1986.
- 5) Nortje, C.J. and Wood, R.A.: The radiologic features of the nasopalatine duct cyst: an analysis of 46 cases. Dentomaxillofac Radiol 17: 129-132 1988.
- 6) Swanson, K.S., Kaugars, G.E., et al.: Nasopalatine duct cyst: an analysis of 334 cases. J Oral Maxillofac Surg 49: 268-271 1991.
- 7) Vasconcelos, R.F., Ferreira de Aguiar, M.C., et al.: Retrospective analysis of 31 cases of nasopalatine duct cyst. Oral Dis 5: 325-328 1999.
- 8) Pevsner, P.H., Bast, W.G., et al.: CT analysis of a complicated nasopalatine duct cyst. N Y State Dental J 66: 18-20 2000.
- 9) Ely, N., Sheehy, E.C., et al.: Nasopalatine duct cyst: a case report. Int J Paedi Dent 11: 135-137 2001.
- 10) Elliot, K.A., Franzese, C.B., et al.: Diagnosis and surgical management of nasopalatine duct cysts. Laryngoscope 114: 1336-1340 2004.