Endoscopic Modified Medial Maxillectomyにより 摘出した上顎洞含歯性嚢胞例

木村 優里^{1,2)}, 高石 慎也²⁾, 鴻 信義²⁾,
小島 博己²⁾

¹⁾同愛記念病院耳鼻咽喉科

²⁾東京慈恵会医科大学附属病院耳鼻咽喉科

含歯性嚢胞とは、埋伏歯の歯頸部に、歯冠を取り囲むように形成される歯源性嚢胞疾患である。埋伏歯と嚢胞の全摘出が一般的な治療方法であるが、上顎洞への進展例では通常の内視鏡下鼻内手術で摘出操作が及ばず、犬歯窩アプローチを要することも多い。今回我々は上顎洞含歯性嚢胞に対しEndoscopic Modified Medial Maxillectomy (EMMM) の手法を用い鼻内法のみで手術治療をした1例を経験した。症例は40歳女性、歯源性腫瘍疑いで当院紹介受診となった。副鼻腔CTでは左上顎洞内に埋伏歯の歯冠を腔内に含む内部不均一な陰影を認め、上顎洞外側壁、後壁に骨欠損を認めた。歯源性嚢胞を鑑別の第1に考え、EMMMを施行した。腫瘍は嚢胞壁で被覆されており、嚢胞壁を上顎洞内側粘膜から剥離摘出し、続いて埋伏歯を摘出した。嚢胞壁の病理所見は非角化重層扁平上皮で裏打ちされており、含歯性嚢胞に矛盾しない所見であった。非角化重層扁平上皮は線毛を有さないため自浄作用を期待できず、含歯性嚢胞に対する手術の際は嚢胞の開窓ではなく全摘出が望まれる。本症例では、術後に患者は上顎歯領域のしびれを訴えたが、数か月で改善した。嚢胞に含まれる歯牙の抜歯処置による上歯槽神経障害によって生じたと考えられるが、上歯槽神経は神経叢を形成するため経時的に代償され改善したものと考えられる。含歯性嚢胞の術後には、埋伏歯の抜歯処置に起因するしびれが起こりうるので、患者に対する術前のインフォームドコンセントが重要である。

キーワード：Endoscopic Modified Medial Maxillectomy, 含歯性嚢胞, 歯源性嚢胞

A Case Report of a Maxillary Dentigerous Cyst Resected Using Endoscopic Modified Medial Maxillectomy

Yuri Kimura^{1,2)}, Shinya Takaishi²⁾, Nobuyoshi Otori²⁾, Hiromi Kojima²⁾

¹⁾Otorhinolaryngology, Fraternity Memorial Hospital

²⁾Department of Otorhinolaryngology, The Jikei University School of Medicine

Odontogenic maxillary cysts are dental cysts that form around the crown in the cervical region of impacted teeth. Total removal of the impacted teeth and cysts is a common treatment, but in cases with extension to the maxillary sinus, this removal cannot be achieved by conventional endoscopic intranasal surgery and a canine fossa approach is often required. Numerous endoscopic surgical techniques for treating maxillary sinus disease have been reported in recent years, including endoscopic modified medial maxillectomy (EMMM), which is

used to obtain direct access to the maxillary sinus. We successfully treated an odontogenic cyst with EMMM in a 40-year-old female patient. Computed tomography revealed a cystic lesion containing the crown of the impacted tooth in the left maxillary sinus and bone defects in the posterior and lateral walls of the left maxillary sinus. T2 magnetic resonance imaging (MRI) showed a high-intensity lesion and T1 MRI showed a low-intensity lesion in the left maxillary sinus. The lesion, which was suspected to be a dental cyst, was removed using EMMM with a good view of the surgical field. The tumor was covered with a cyst wall that was exfoliated from the medial mucosa of the maxillary sinus, followed by an impacted tooth. The pathological findings were cystic lesions with lumen lined with a squamous epithelium, rather than a ciliated epithelium. No recurrence was observed for 3 months after surgery. Since the non-keratinized stratified squamous epithelium does not have pili, it cannot be expected to have a self-cleaning effect. Thus, the best treatment for dental cysts is total resection, rather than fenestration, to prevent recurrence. The patient had mild numbness around the upper gingiva, but this improved a few months after surgery. Neuropathy of the superior alveolar nerve was caused by pulling out the tooth, and this improved due to a compensatory change of the nerve plexus. This emphasizes the importance of preoperative informed consent for patients because numbness due to extraction of the impacted teeth can occur after tooth-bearing cyst surgery. We believe that this method can be an option for treating odontogenic sinusitis, but long-term follow-up of the present case and further accumulation of cases are needed to support our findings.

Key words: Endoscopic Modified Medial Maxillectomy, Dental cyst, Odontogenic cyst

(2021年1月24日受稿, 2021年5月28日受理)

はじめに

含菌性嚢胞は、菌原性腫瘍の中でも菌根嚢胞に次いで2番目に多いとされている。逆性菌や過剰菌の周囲に生じ、菌原性嚢胞の16-30%を占める¹⁾。嚢胞内壁が上皮性成分で被覆される上皮性嚢胞であり、嚢胞壁には埋没菌を有し、治療としては全摘出術が望ましいとされている²⁾。従来の鼻副鼻腔内視鏡手術と比較して上顎洞内の広い視野が得られるEndoscopic Modified Medial Maxillectomy (EMMM) が内反性乳頭腫や術後性上顎嚢胞に対する手術として報告されてきた³⁾。EMMMは犬歯下切開と異なり、上顎洞前壁を可逆的に温存することで眼窩下神経や前上歯槽神経の損傷リスクは低いとされている⁴⁾。

今回我々はEMMMにより含菌性嚢胞を摘出した1例を経験したので報告する。

症 例

症 例：40歳、女性

主 訴：鼻閉

既往歴：甲状腺腫瘍経過観察中

現病歴：鼻閉を主訴に近医耳鼻科を受診した。副鼻腔単純CTを撮影したところ、左上顎洞に異所性歯牙、嚢胞様陰影所見を認め菌原性腫瘍の疑いで当院紹介受診となった。

身体所見：鼻腔内に明らかなポリープや膿汁を認めなかった。左下鼻道側壁の膨隆も認めなかった。口腔に歯肉の腫脹や硬口蓋の膨隆は認めなかった。上顎は左右とも中切歯から第2大臼歯まで欠損なく、上顎歯列に左右差は認めなかった。

血液検査所見：WBC 3,900/ μ l, CRP 0.04 mg/dl

画像所見：

副鼻腔単純CT：左上顎洞内に埋伏歯の歯冠を腔内に含む内部不均一な陰影を認め、上顎洞外側壁、後壁に一部骨欠損を認めた。歯牙は歯冠部が外側を向いた状態で存在していた（図1）。

副鼻腔MRI：左上顎洞内にT1強調像で低信号、T2強調像で高信号を主体とした内部不均一な信号を示す腫瘍性病変を認めた。頭側は眼窩下壁を圧排し、外側は頬筋への膨隆がみられた。左上顎洞下壁内側に過剰埋没歯を認め、歯冠を取り囲むような嚢胞様陰影を示した（図2）。

鑑別疾患：含菌性嚢胞が鑑別の第1に挙がり、他に腺様菌原性腫瘍、菌原性粘液腫、エナメル上皮腫が鑑別に挙がった。

術中所見：外来での生検は困難であったため、術後病理所見によっては追加治療の可能性もあることを説明し、全身麻酔下で手術を施行した。EMMMの手法を用い、左鼻涙管、下鼻甲介を内側に避けた（図3a）。左上顎洞内側壁を除去したところ嚢胞壁を認め、サクシオン

図1 術前副鼻腔単純CT (a)：冠状断 (b)：軸位断。左上顎洞内に埋伏歯の歯冠を腔内に含む内部不均一な陰影を認め、上顎洞外側壁の骨消失を認める。

図2 術前副鼻腔単純MRI。T1強調像 (a)：冠状断 (b)：軸位断 T2強調像 (c)：冠状断 (d)：軸位断 左上顎洞内の異所性歯牙の歯冠を囲む嚢胞様陰影は内部不均一である。

図3 手術所見

キュレットを用いてこの嚢胞壁を上顎洞粘膜から剥離した（図3b）。歯頸部と嚢胞壁は固く結合していたが、鉗子で嚢胞壁を把持し歯頸部から外して摘出した。残った埋伏歯は上顎洞下壁に深く埋没しており、鉗子操作のみでは摘出困難であった。そのため埋伏歯周囲をドリルで削り、歯牙の固着を解除してから鉗子で把持し摘出した（図3c, d）。

病理所見：摘出した嚢胞壁の病理所見は、異型に乏しい非角化重層扁平上皮で裏打ちされていた。繊維性結合組織と非角化扁平上皮の2層で構成されており、上皮に線毛は認めず、含菌性嚢胞として矛盾しない所見であった（図4）。

術後経過：術後左上顎歯領域のしびれを訴えたが約3か月の間に経時的に改善した。術後CTでは上顎洞の含気は良好であり、口腔との瘻孔も認めなかった（図5）。

考 察

含菌性嚢胞は埋伏歯の歯頸部に、歯冠を取り囲むように形成される発育性の歯原性嚢胞疾患であり、顎骨嚢胞の10-15%を占め歯根嚢胞に次いで多いとされている。

図4 病理所見。HE染色 200倍。嚢胞を裏打ちする上皮は非角化重層扁平上皮に覆われていた。

好発年齢は10-30歳代で男性に多く、好発部位は下顎では智歯部、小臼歯であり、上顎では犬歯部、智歯部に多く認める⁵⁾。臨床的には緩慢な経過をとるため大きくなるまで発見されず、X線検査で偶然発見されることも多い⁶⁾。含菌性嚢胞は画像所見のみでは確定診断できず、病

図5 術後副鼻腔CT (a)：冠状断 (b)：水平断。上顎洞の含気はたもたれており，歯牙の残存を認めなかった。

理所見で非角化重層扁平上皮と繊維性結合組織の2層構造を形成することが特徴的である¹⁾。本症例では術前に画像所見から歯源性嚢胞を鑑別の第1に挙げた。MRIで左上顎洞内にT1強調像で低信号，T2強調像で高信号を主体とした内部不均一な信号を示す腫瘤性病変を認め，鑑別診断として腺様歯源性腫瘍，歯源性粘液腫，エナメル上皮腫も挙げた。手術で摘出した嚢胞壁の病理所見から，含歯性嚢胞の確定診断となった。また，口腔所見では上顎は左右とも中切歯から第2大臼歯まで欠損なく，上顎歯列に左右差を認めなかったことより，含歯性嚢胞の埋伏歯は過剰歯であると考えられた。含歯性嚢胞内の埋伏歯は上顎の場合は過剰歯が最も多く，次いで犬歯，小白歯，智歯，切歯であったと報告されている⁷⁾。

含歯性嚢胞に対する歯科・口腔外科における治療としては，犬歯窩切開アプローチによるCaldwell-Luc手術があるが，Caldwell-Luc手術では前上歯槽神経障害による上顎歯のしびれを認めることがある⁸⁾。従来耳鼻咽喉科においては，上顎洞に進展する嚢胞に対し上顎洞自然孔経由での内視鏡下鼻副鼻腔手術により治療をされることが多かったが，摘出操作が及ばず犬歯窩アプローチを併用することもあった。今回我々は上顎洞含歯性嚢胞に対しEMMMの手法を用い，鼻内法のみで手術治療を行った。EMMMは，下鼻甲介と鼻涙管を内側に寄せ上顎洞内側壁の一部を取り除くことにより上顎洞内腔へ直線的にアプローチすることを可能とする手術方法である。EMMMは内反性乳頭腫や術後性上顎嚢胞などに対する手術方法として有用性が報告されているが³⁾，上顎洞に

進展する含歯性嚢胞に対しても有用であると考ええる。EMMMを用いることで，上顎洞自然孔経由でのアプローチと比較して，より上顎洞外側，もしくはより前方までの鼻内手術操作が可能になり，本症例のように犬歯窩アプローチの併用を回避できることもある。EMMMは犬歯下切開と異なり，上顎洞前壁を温存することで眼窩下神経や前上歯槽神経の損傷リスクは低いとされている⁴⁾。EMMMの限界としては上顎洞や眼窩底の最前方部は盲点となり鼻内からの手術操作が及ばない⁹⁾。その為，これらの部位の手術操作には犬歯下切開の併用を要すると考えられる。

本症例の病理所見では，異形に乏しい非角化性重層扁平上皮で被覆されており，嚢胞上皮に石灰化を含む肉芽腫が形成されていた。含歯性嚢胞をはじめとする歯源性嚢胞は非角化扁平上皮で構成される。これに対し副鼻腔原発嚢胞，術後性上顎嚢胞は鼻副鼻腔由来の嚢胞であるため嚢胞を裏打ちする上皮は線毛上皮で被覆されており，線毛細胞上皮による自浄作用が期待できる。線毛を有する副鼻腔原発嚢胞，術後性上顎嚢胞に対しては開窓のみで効果が期待できるが，歯源性腫瘍・嚢胞は歯源性上皮に由来する重層扁平上皮が多く線毛を有さないため，開窓のみでは粘液，デブリスが貯留する可能性がある。端山らは含歯性嚢胞に対する内視鏡下手術で全摘出ができず開窓にとどめた1例では術後に後鼻漏が残存したと報告している¹⁰⁾。病理所見から含歯性嚢胞に対しては開窓ではなく全摘出術が望ましいと考える。稀ではあるが含歯性嚢胞からの悪性転化も認められており²⁾，本

邦における悪性化症例は、1961年からの調査で10例¹¹⁾、世界では1972年からの調査で30例の報告がある¹²⁾。悪性転化の要因は不明であるが、慢性炎症によって嚢胞上皮の悪性形質転換を誘発する可能性があるといわれている¹²⁾。線毛による自浄作用の有無の観点だけでなく、悪性化する可能性の観点からも全摘出術が望ましい。

本症例ではEMMMによる手術施行後、左上顎歯の感覚障害、しびれをきたし、約3か月間で改善した。近年EMMM後の前上歯槽神経障害が報告されている。前上歯槽神経は眼窩下神経が眼窩下孔を通る部位より少し中樞側で上顎神経から分岐し、上顎洞前壁内を下行して梨状口縁外側に至った後に上顎歯槽に分布する。EMMMによる前上歯槽神経損傷のリスクとなる操作は梨状口縁前方のドリル切開、電気メスの止血操作、上顎洞外の露出した前上歯槽神経操作である⁴⁾。本症例では上顎洞内側壁を穿破しPrelacrimal routeから上顎洞内の手術操作をしたが上顎洞前壁や梨状口縁付近の処置はしておらず、前上歯槽神経の走行域の手術操作をしていないため、前上歯槽神経は温存されていると考えられる。含菌性嚢胞の埋伏歯は上顎洞下壁に深く埋没しており、術中鉗子操作のみでは摘出困難であったため、埋伏歯周囲をドリルで削り歯牙の固着を解除し摘出した。含菌性嚢胞の埋伏歯周囲のドリル削開領域に中もしくは後上歯槽神経が走行していた可能性があり、ドリル操作により中もしくは後上歯槽神経障害が起こった可能性がある。上歯槽神経群は上顎骨下壁で神経叢を形成しているため経時的に代償され感覚障害・しびれが改善したものと思われる。我々が調べた限りでは、内視鏡下での上顎洞内の歯に対する抜歯操作の際に上歯槽神経障害をきたしたという報告はなく、歯科領域でも上顎歯根尖と上歯槽神経との距離は離れているため、抜歯操作での上歯槽神経障害はかなり少ないとされている¹³⁾。しかし本症例のように、含菌性嚢胞の術後に埋伏歯抜歯処置に起因すると考えられる上顎歯の一時的な感覚障害、しびれが起こる症例もあり、合併症回避のためには抜歯処置の際に周辺の神経走行も考慮し、埋伏歯周囲のドリル操作や止血のための焼灼処置を最小限に抑えることが重要であると考えられる。また、患者に対する合併症についての術前のインフォームドコンセントも重要であると考えられる。

ま と め

今回上顎洞に進展した含菌性嚢胞をEMMMの手法を用い鼻内法で全摘出した1症例を経験した。含菌性嚢胞が線毛を有さない病理所見であることから、嚢胞の開窓ではなく全摘出術が望ましいと考える。EMMMは鼻腔

形態を温存した合併症の少ないアプローチ法であるが、本症例では上顎歯のしびれ・感覚障害が術後一時的に生じた。上顎洞前壁内や梨状口縁付近の前上歯槽神経の走行する領域の手術操作をしていないことを考慮すると、近年報告されているEMMMの前上歯槽神経障害の機序とは異なり、含菌性嚢胞に含有される歯牙の抜歯時のドリル操作により中もしくは後上歯槽神経障害が生じた可能性があると考えられる。上歯槽神経群は神経叢を形成しているため経時的に代償され、しびれ・感覚障害が改善したと思われる。このように含菌性嚢胞の術後には、埋伏歯の抜歯処置に起因するしびれが起こりうるため、患者に対する術前のインフォームドコンセントが重要である。

本論文について申告すべき利益相反を有しない。

参考文献

- 1) 近藤壽郎：歯源性嚢胞．耳展 2007; 50: 186-191.
- 2) Yasuoka T, Yonemoto K, Kato Y, et al: Squamous cell carcinoma arising in a dentigerous cyst. J Oral Maxillofac Surg 2000; 58: 900-905.
- 3) Nakayama T, Asaka D, Okushi T, et al: Endoscopic medial maxillectomy with preservation of inferior turbinate and nasolacrimal duct. Am J Rhinol Allergy 2012; 26: 405-408.
- 4) 久満美奈子, 大塚雄一郎, 船越うらら, 他：Endoscopic Modified Medial Maxillectomy (EMMM) における前歯槽神経損傷のリスク評価. 日耳鼻 2018; 121: 1479-1485.
- 5) 岡本俊宏：歯源性嚢胞と歯源性腫瘍．耳展 2017; 60: 243-252.
- 6) 米本嘉憲, 中山康弘：巨大な小児含菌性嚢胞の1例. 小児口外 2003; 13: 27-29.
- 7) 中村誠司, 篠原正徳, 原田 猛, 他：含菌性嚢胞と原始性嚢胞の臨床的・病理組織学的検討. 日口外誌 1995; 41: 62-69.
- 8) Simon R, Peter JW: Patterns of innervation of the anterior maxilla: A cadaver study with relevance to canine fossa puncture of the maxillary sinus. Laryngoscope 2005; 115: 1785-1788.
- 9) Takaishi S, Iimura J, Otori N: Endoscopic endonasal approach for repairing an outwardly herniated blow-out fracture lateral to the infraorbital nerve. Eur Arch Otorhinolaryngol 2020; 277: 3227-3230.
- 10) 端山昌樹, 吉波和隆, 津田 武, 他：内視鏡手術を行った上顎洞含菌性嚢胞の2例. 頭頸部外科 2015; 25:

91-97.

- 11) 奥田八重子, 岡上真裕, 生木俊輔, 他: 裏装上皮に悪性転化を認めた歯原性角化嚢胞の1例. 日口外誌 2004; 50: 277-280.
- 12) Gay EC, Camps FO, Lopez RM, et al: Primary intraosseous squamous cell carcinoma arising in

dentigerous cyst: Report of 2 cases and review of the literature. J Clin Exp Dent 2015; 7: 665-670.

- 13) 千葉雅俊, 樋口景介, 近藤武光, 他: 歯科治療を契機に発症した三叉神経領域の神経因性疼痛の臨床像. 口科誌 2008; 57: 379-384.