鼻内内視鏡を併用して摘出した鼻口蓋管嚢胞の1例

生 駒 亮¹⁾ 丹 羽 一 友¹⁾ 折 館 伸 彦²⁾

要旨：鼻口蓋管嚢胞は、胎生期に存在する鼻口蓋管の上皮遺残に由来し、WHO の分類では非歯原性上皮性嚢胞の一つとされている。今回われわれは、鼻内内視鏡の併用で摘出しえた鼻口蓋管嚢胞例を経験したので報告する。症例は63歳の男性で、主訴は右鼻前庭部の腫脹。右鼻腔底の腫脹と、硬口蓋に一部骨欠損を認めた。鼻内内視鏡併用で、歯齦部切開により摘出術を施行した。鼻内内視鏡は、より良好な手術視野確保のために有効であった。術後の合併症は認めず、術後4年で再発を認めていない。鼻口蓋管嚢胞は、鼻内内視鏡操作に熟練する耳鼻咽喉科医が積極的に関与すべき疾患であると思われる。

キーワード：嚢胞性疾患、非歯原性上皮性嚢胞、ESS、鼻口蓋神経

Summary A case of nasopalatine duct cyst removed with the assistance of a nasal endoscopy system: Ryo Ikoma¹⁾, Kazutomo Niwa¹⁾ and Nobuhiko Oridate²⁾. ¹⁾ Department of Otolaryngology, Yokohama Minami Kyosai Hospital, ²⁾ Department of Otolaryngology, Head and Neck Surgery, Yokohama City University Hospital

The nasopalatine duct cyst is one of the nonodontogenic epithelial cysts according to the WHO classification, and it arises from the epithelial remnants of the nasopalatine duct of the fetus.

Here we report our experience of a case of a nasopalatine duct cyst removed with the assistance of a nasal endoscopy system. A 63-year-old man presented with swelling of the right nasal vestibule. Elevation of the floor of the right nasal cavity and the bone defect of a part of the hard palate were observed. The cyst was removed by the combination of the gingival approach and nasal endoscopy system. Nasal endoscopy was useful for getting a better view of the surgical field. The patient had no postoperative complications and showed no recurrence for four years after the surgery. Because the nasal endoscopy technique is familiar to otolaryngologists, we should positively treat nasopalatine duct cysts.

Key words: cystic lesion, nonodontogenic epithelial cyst, ESS, nasopalatine nerve

[Received Dec. 25, 2014, Accepted Apr. 4, 2015]

はじめに

鼻口蓋管嚢胞は、胎生期に存在する鼻口蓋管の上皮遺残に由来し、WHO の分類では非歯原性上皮性嚢胞の一つとされている¹⁾。本嚢胞の発生は比較的まれとされており²⁾、本邦において多数例について検討した報告は少なく、その大半が口腔外科からの報告である。今回われわれは、鼻内内視鏡の併用で

摘出しえた鼻口蓋管嚢胞例を経験したので報告する。

症 例

症例：63歳、男性。

主訴：右鼻前庭部の腫脹、疼痛。

現病歴：6か月前頃より右鼻前庭部の腫脹を自覚。鈍痛を感じるようになり、近医耳鼻咽喉科を受診。精査加療目的に当科に紹介となった。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現症：右鼻前庭から鼻腔底、犬歯窩にかけて波動を伴う腫瘤を触知した。また、触診で硬口蓋に一部

¹⁾ 横浜南共済病院耳鼻咽喉科

²⁾ 横浜市立大学附属病院耳鼻咽喉科・頭頸部外科

[平成26年12月25日受付、平成27年4月4日受理]

図1 副鼻腔単純CT (a：水平断，b：矢状断，c：冠状断)
a：右鼻腔の前端付近に30mm大の腫瘍があり(矢頭)，周囲の骨欠損を認める。
b：腫瘍(矢頭)の下部に硬口蓋の骨欠損を認める(矢印)。
c：腫瘍が鼻腔底を外側下方から圧排している(矢頭)。

骨欠損が疑われた。

画像所見：図1は副鼻腔単純CTである。水平断では右鼻腔の前端付近に30mm大の腫瘍があり，周囲の骨欠損を認めた。矢状断では硬口蓋の骨欠損を認め，冠状断では腫瘍が鼻腔底を外側下方から圧排していた。図2は単純MRIである。矢状断では硬口蓋の粘膜は保たれており，腫瘍は内容均一でT1強調で等信号，T2強調で高信号を呈しており，内部に充実成分の存在を疑う所見は認めなかった。

細胞診所見：歯齦部からの穿刺内容液は黒褐色漿液性で細胞診はclass Iであった。

図2 副鼻腔単純MRI (a：水平断 T2W，b：矢状断 T1W)
a：腫瘍(矢頭)周囲には低吸収域があり，周囲への浸潤傾向は見られない。
b：硬口蓋粘膜は保たれている(矢印)。腫瘍は内容均一でT1強調で等信号，T2強調で高信号を呈している。

経過：これらの所見から鼻口蓋管嚢胞を疑い，歯齦切開による摘出術を施行した。

術中所見(図3a-e)：歯齦部を切開し嚢胞表面に達した。嚢胞が緊満しており，嚢胞の後方視野が不十分で剝離操作が困難であったため，鼻内から穿刺して減量を行った(図3a)。嚢胞壁は薄く，周囲の結合組織をペアンで把持して鈍的剝離を行った(図3b)。同部位を走行する鼻口蓋神経は，嚢胞壁に沿って嚢胞の左前方を走行していた。剝離温存が困難であったため，結紮し合併切除した。鼻腔粘膜は嚢胞の圧迫により菲薄化しており，嚢胞壁と鼻腔粘膜との剝離は困難で，嚢胞壁の遺残を避けるために，鼻腔底の粘膜を一部嚢胞につけて摘出する方針とした。経歯齦部の直視下操作では，嚢胞の後上方部の視野確保が不十分であった。嚢胞の圧迫で下鼻甲介は萎縮しており，経鼻内視鏡下で下鼻道を明視下におくことが可能で，かつ操作も容易であった(図3c)。さらに，経歯齦部内視鏡的にも嚢胞壁の遺残の有無を確認した。経歯齦的内視鏡操作は，術者が座位で肘を固定することにより，カメラが固定され，安定した視野が得られた。摘出後の所見を示す(図3d, e)。

図 3 a-e : 術中所見

- a : 嚢胞後方の視野を得るために、鼻内から穿刺し、減荷（矢印：右下鼻甲介，◆：鼻中隔）。
- b : 嚢胞壁は薄く、周囲の結合組織をペアンで把持して剝離。
- c : 嚢胞壁と鼻腔底との剝離は困難で、鼻腔底の粘膜を一部嚢胞につけるように剝離（矢印：右下鼻甲介，◆：鼻中隔）。
- d : 摘出後の鼻内所見。鼻腔底に粘膜欠損を認める（矢印：右下鼻甲介，◆：鼻中隔）。
- e : 摘出後の径歯齦部所見。鼻腔底との交通（白破線）。硬口蓋骨膜は保たれており、口腔との交通は認めない（黒破線）。

硬口蓋骨欠損部の剝離操作の際に、口腔との交通ができることが危惧されたが、硬口蓋骨膜の欠損は認めず、また硬口蓋骨膜と嚢胞粘膜の癒着はなく、剝離は容易であった。摘出標本の内容に充実成分は認めなかった（図4）。

病理所見：摘出検体の病理所見を図5に示す。嚢胞上皮は重層扁平上皮と線毛円柱上皮が混在しており、鼻口蓋管嚢胞に特徴的所見であった。腫瘍性病変は認めず、術後病理診断は鼻口蓋管嚢胞であった。

経過：術後、腫脹や痛みは消失した。鼻口蓋神経

の切断による知覚麻痺等の合併症は認めなかった。合併切除した鼻腔底の粘膜欠損は、術後3か月には上皮化された（図6）。術後6か月のCTを図7に示す。嚢胞の摘出部位は自然充填されている。現在術後4年であるが、再発を認めていない。

考 察

耳鼻咽喉科領域では上顎骨周囲に発生する嚢胞性病変として、鼻前庭嚢胞が多く経験される。鼻口蓋管嚢胞は、胎生期の口蓋突起癒合部前方部分の、鼻

図 4 摘出標本
嚢胞内に充実成分は認めない。

図 6 術後3か月後の鼻内所見
上皮化は良好で、術直後に見られた粘膜欠損部は認めない。

図 5 病理所見 (HE 染色)
重層扁平上皮 (a) と線毛円柱上皮 (b) が混在している。

図 7 術後6か月の副鼻腔単純 CT (a：矢状断, b：冠状断)
嚢胞の摘出部位は自然充填されている。

腔と口腔を連絡する鼻口蓋管に残存した上皮から発生する嚢胞であり³⁾、胎生期の顔面形成時の球状突起から生じる鼻前庭嚢胞とは区別される。疫学的には40歳以上の男性に多いとされる⁴⁾。病理組織学的所見は、嚢胞壁は上皮に被覆された結合織からなり、この上皮は扁平上皮、移行上皮、立方上皮、線毛円柱上皮など様々で、1種類のみで構成されていることは少ないとされる⁵⁾。初期には自覚症状を認めないことが多いが、嚢胞の増大によって口蓋の腫

表 1 鼻口蓋管嚢胞の手術術式ならびにアプローチ方法

術式	アプローチ
嚢胞開放術	経歯齦部法
開放のみ	経口蓋法
粘膜弁作成	内視鏡下鼻内法
嚢胞摘出術	
一期的閉創	
人工物の充填	
ドレーナージルート作成	

脹、総鼻道の狭窄に伴う鼻閉、歯牙に進展し歯痛や歯牙動揺、瘻孔形成を生じることがある^{2,4)}。自然消退は認めず、治療は手術療法のみが有効とされている⁶⁾。鼻口蓋管嚢胞の術式およびアプローチ方法の分類を表1に示す。本症例では、嚢胞壁が鼻腔粘膜と接しており、経歯齦部アプローチと鼻内内視鏡下アプローチを併用した。

術式について考察する。嚢胞開放術に関しては、本疾患の解剖学的位置関係から、開放するのは鼻腔または口腔になる。口腔への開放は、経口摂取時に食物が混入し、不衛生となりうることを考慮すると、適切ではないと考える⁷⁾。鼻内内視鏡下に、術後性上顎嚢胞の鼻腔への開放と同様の要領で行えば、鼻腔への開放は比較的容易でかつ安全な方法である。しかしながら嚢胞に悪性腫瘍が合併していた報告も散見される⁸⁻¹⁰⁾。診断確定や悪性腫瘍鑑別のためにも早期の手術を推奨している報告もあり^{11,12)}、嚢胞摘出術が第一選択であると思われる。嚢胞摘出術の術後再発率は11%以下で瘻孔形成率は2~4%と報告されている⁶⁾。術前の画像診断ならびに術中所見で充実成分がなく悪性を疑わない症例で¹²⁾、嚢胞の大きさや患者状態などの理由により嚢胞の完全摘出が困難な症例に対しては、鼻内内視鏡下に鼻腔への嚢胞開放も術式選択の一つとなると考えられる⁷⁾。

摘出術におけるアプローチ方法について考察する。本疾患は口腔外科からの報告が多いためか、摘出のアプローチでは経歯齦部法と経口蓋法とが報告されている^{2,13,14)}。口蓋の処理に熟練している口腔外科医でも、視野展開の理由から経歯齦部法を選択する利点を述べている報告が多い^{2,13)}。しかしながら鼻口蓋管嚢胞は、その発生学的特徴から、多くの術後性上顎嚢胞に比べ前方に存在するため、経歯齦部アプローチのみでは嚢胞の上方視野がとりづらい。さらに本症例のように鼻腔底の骨が欠損し、嚢胞壁と鼻腔粘膜とが接している症例も多く^{5,7,12)}、非明視下の操作では薄い嚢胞壁の遺残につながりうる。経鼻腔的に鼻内内視鏡を併用することにより、

より明視下に嚢胞壁の同定が可能となり、嚢胞壁の鼻腔粘膜との剝離、または鼻腔粘膜の合併切除も容易となる。この操作により嚢胞壁の完全摘出につながると考える。われわれ耳鼻咽喉科医は経歯齦部法に習熟しており、さらに鼻内内視鏡を併用することにより、本症例同様、より良好な視野の確保が可能になると考えられる。

摘出術後の死腔の処理について考察する。術後の死腔が30mm程度の症例で、海綿骨で充填し有用であったとの報告がある⁵⁾。一方、自然充填が70~82%で起こる点、自家軟骨や骨パテの充填症例での感染の報告もある点から、死腔が大きく自然充填が期待できない症例を除き、充填を行っていない報告もある¹⁵⁾。高橋らは、最大径63mmの鼻口蓋管嚢胞17例において、全例で摘出、充填なしの一期的閉創を行い、全例において自然充填されたと報告している¹³⁾。同様に巨大例において摘出と一期的閉創で自然治癒した報告もある¹⁶⁾。本症例においても死腔径が30mm程度で、術後3か月の時点で自然充填された。感染等のリスクを考慮すると、一般に充填は不要であると考えられる。

本疾患は口腔外科からの報告が多く、渉猟しえた範囲で摘出術での鼻内内視鏡の有用性について論じている報告はみられない。本疾患の発生学的特徴から、多くの嚢胞が鼻腔底と非常に隣接している。歯齦部切開でアプローチし、経鼻腔ならびに経歯齦部で内視鏡を補助的に用いれば、より良好な視野を得ることができ、完全摘出の一助となりうると思われる。また術中の判断で鼻腔への嚢胞開窓術に変更する場合には、裸眼操作でも可能であるが、鼻内内視鏡を用いればより確実に大きく開放できる。本症例は鼻内内視鏡操作に熟練する耳鼻咽喉科医が積極的に関与すべき疾患の一つであると思われる。

ま と め

比較的まれとされる鼻口蓋管嚢胞症例を経験した。歯齦部切開アプローチに鼻内内視鏡を併用することにより、良好な結果を得た。

この論文の要旨は、第23回日本頭頸部外科学会学術講演会（2013年1月鹿児島）にて口演した。

著者は申告すべき利益相反を有しない。

文 献

- 1) 武田泰典, 高田 隆: WHOによる菌原性腫瘍の新たな組織分類とそれに関連する上皮性腫瘍について. 日口外誌, 52: 54-61, 2006.
- 2) 高山泰男, 遠山良成, 松本光彦, 他: 鼻口蓋管嚢胞

- の20例. 日口外誌, 34: 1444-1454, 1988.
- 3) 石川 梧朗: 鼻口蓋管嚢胞. 口腔病理学Ⅱ 第2版. 386-388, 永末書店, 京都, 1984.
- 4) Anneroth G, Hall G, Stuge U: Nasopalatine duct cyst. *Int Oral Maxillofac Surg* 15: 572-582, 1986.
- 5) 河田恭孝, 河田 桂, 藤木暢也, 他: 自家海綿骨で再建を行った鼻口蓋管嚢胞例. 耳鼻臨床, 93: 731-735, 2000.
- 6) Elliott KA, Franzese CB, Pitman KT: Diagnosis and surgical management of nasopalatine duct cyst. *Laryngoscope* 114: 1336-1340, 2004.
- 7) 南 和彦, 坂本 進, 西村一成, 他: 鼻腔に開放した鼻口蓋管嚢胞例. 耳鼻臨床, 106: 207-212, 2013.
- 8) Takagi R, Ohashi Y, Suzuki M: Squamous cell carcinoma in the maxilla probably originating from a nasopalatine duct cyst. *J Oral Maxillofac Surg* 54: 112-115, 1996.
- 9) 田村暢章, 三宅 実, 小川尊明, 他: 鼻口蓋管嚢胞から発生したと考えられた上顎骨中心性癌の1例. 日口外誌, 51: 364-367, 2005.
- 10) 西川正典, 山本 学, 田中章夫, 他: 鼻口蓋管嚢胞の一部に発現した扁平上皮癌の1例. 日口外誌, 46: 578-580, 2000.
- 11) Francolí JE, Marqués NA, Aytés LB, et al: Nasopalatine duct cyst: report of 22 cases and review of the literature. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 13: E438-E443, 2008.
- 12) Hisatomi M, Asaumi J, Konouchi H, et al: MR imaging of nasopalatine duct cysts. *Eur J Radiol*: 73-76, 2001.
- 13) 高橋喜久雄, 山本 誠, 齋藤謙悟, 他: 鼻口蓋管嚢胞17例の臨床病理学的検討. 日口外誌, 51: 11-17, 2005.
- 14) 大坪和則, 橋本房三, 白水博子, 他: 切歯管嚢胞の6例. 鶴見歯学, 8: 87-94, 1982.
- 15) 齊藤祐毅, 岡田和也, 田中利善, 他: 歯齦部切開にて摘出した鼻口蓋管嚢胞の1例. 耳喉頭頸, 78: 761-763, 2006.
- 16) 松吉秀武, 渡利昭彦, 佐藤祐司, 他: 硬口蓋の巨大な鼻口蓋管嚢胞の1症例. 耳喉頭頸, 70: 751-754, 1998.