症例報告

両側性に生じた鼻唇嚢胞の1例

河野 辰行 池田 麻美 吉岡 俊一
阿部 史佳 山本 哲彰 河野 憲司

抄録：44歳の女性に生じた両側性鼻唇嚢胞の1例を報告する。鼻翼基部の腫脹を主訴に当科を受診した。両側上顎犬歯部口腔前庭に波動を伴う腫脹を認め、同部の穿刺吸引細胞診にて黄色の液体を吸引した。さらにCTで両側に2つの独立した嚢胞様病変を認めた。両側鼻唇嚢胞の臨床診断のもと、全身麻酔下に摘出した。嚢胞はそれぞれ独立して存在していた。病理組織学的検査で杯細胞を有する多列線毛円柱上皮で裏装された嚢胞壁を認めた。

キーワード：鼻唇嚢胞, 鼻齒槽嚢胞, 両側性

緒 言

鼻唇嚢胞は鼻翼基部の歯槽突起の上の軟組織内に生じる非菌原性嚢胞で¹⁾、通常片側性に生じ、両側性に発生することはまれとされている²⁻⁴⁾。

われわれは両側性に生じた鼻唇嚢胞の1例を経験したのでその概要を文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：44歳女性。

初診：2005年5月下旬。

主訴：右鼻翼基部の腫脹。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

生活歴：喫煙10本/日。

現病歴：2000年頃より右上側顎前歯部相当口腔前庭に軽度腫脹を自覚していたが疼痛なく放置していた。2005年5月中旬に同部に自発痛を生じ近歯科医院を受診した。同院にて撮影したX線写真で異常所見はなく、軟組織疾患の可能性を疑われ2005年5月下旬に紹介により当科初診となった。

現症：全身所見；身長163cm 体重65kgで体格・栄養状態は良好であった。

口腔外所見：右側鼻翼基部の腫脹による鼻翼幅径の増大と鼻唇溝の不明瞭化を認めた（図1）。

口腔内所見：右側上顎前歯部相当口腔前庭に波動を伴う腫脹を認めた（図2）。また左側上顎前歯部相当口腔前庭の軽度腫脹を認めた。

画像検査所見：パノラマX線写真で顎骨内に異常所見は認めなかった。造影CT検査にて両側梨状口下部に類円形の病変を認めた（図3）。病変は境界明瞭で周辺部は造影効果を有し、内部は筋肉と同程度の信号強度を示していた。

図1 Photograph at the first visit
There is swelling in right alar base. Expansion of the interalar width is observed.

図2 Intraoral photograph at the first visit
Fluctuation is bilaterally palpable at the vestibule of the anterior maxilla.

図3 Panoramic radiograph and CT

No abnormal findings in maxilla and teeth (A).
Two well defined cystic lesions exist in the bilateral alar base region (B).

A : panoramic radiograph, B : enhanced CT

穿刺吸引細胞診：右側の嚢胞の穿刺を行ったところ、黄色で軽度混濁を認める内容液を吸引した。内容液から多数の好中球、好酸球と少数のリンパ球、細菌を認め、悪性を示唆する所見はなかった。

臨床診断：両側性鼻唇嚢胞。

処置および経過：内容液の性状より臨床的に嚢胞性疾患が疑われ、摘出術を提案するも手術の同意が得られず、受診が一時中断した。2009年6月中旬に左側鼻翼基部の腫脹と疼痛を自覚し受診。左側の腫脹部に穿刺を行い、黄色で膿様の内容液を吸引した。再度手術の提案を行うも同意せず、再び受診が中断した。2013年8月下旬に両側の鼻翼基部の腫脹が増大したために当科受診となった。再度手術の必要性を説明し同意が得られたため、11月上旬に全身麻酔にて摘出術を施行した（図4）。病変上に粘膜切開を加え、病変に沿って剥離を進めた。病変と上顎歯槽骨の接触面では骨膜下に剥離を行い、両側の病変を摘出した。上顎歯槽骨面には圧迫による陥凹を認めた。左右の病変は互いに連続しておらず、右側は黄白色の内容液を、左側は茶褐色の内容液を含んでいた。摘出後は両側鼻翼基部の皮下組織を4-0ナイロン糸で引き寄せ、鼻形態の修正を行った（図5）。現在術後2年が経過しているが再発なく経過

図4 Intraoperative photographs

Swelling is observed in the vestibule (A). Cystic lesions are separate (B).

良好である。

病理組織学的所見：両側の病変はいずれも内面を杯細胞を伴う多列線毛円柱上皮または立方上皮で被覆された線維性結合組織より成っていた（図6）。また左右の病変の裏打ち上皮に差はなく、結合組織内には好中球の浸潤等の急性炎症の所見は認めなかった。

考 察

鼻唇嚢胞は上唇と梨状口の間に発生する非菌原性嚢胞で、その発生頻度は低く、Bhaskarら⁵⁾によると顎顔面領域に発生する非菌原性嚢胞の約2.5%と報告されている。臨床的には上顎犬歯相当部口腔前庭の波動を伴う無症状の腫脹を示し、二次的な感染による疼痛、発赤を生じる⁶⁾。鑑別疾患には粘液嚢胞や嚢胞様唾液腺腫など小唾液腺に由来する疾患が挙げられる。鑑別には病理組織学的検査が必要である。画像診断では骨の詳細と軟組織の良好な境界を高いコントラストで描出できるCTがMRIよりも適しており、CTで鼻翼部の境界明瞭な嚢胞様病変として描出される⁷⁾。自験例ではパノラマX線写真では骨の変化はなく、CTで軟組織内の病変を認めた。これらの病変の解剖学的位置と内容液の性状から鼻唇嚢胞と診断した。

図 5 Photograph at 1 month after operation
The interalar width is improved.

病理組織学的所見では杯細胞を有する多列線毛円柱上皮で裏装され、炎症に伴う扁平上皮化生を示すことがある⁶⁾。自験例では両側ともに多列線毛円柱上皮で裏装されており、病理組織学的所見に同様の所見であったが、内容液の性状はそれぞれ異なっていたことから両病変は互いに独立して生じていることがわかった。左側病変が茶褐色透明の内容液を含有していたのに対し右側病変は黄白色の内容液を含有していた。これは以前に右側の病変に感染の既往があったためと考える。

疫学的には本嚢胞は片側性に発生し、両側性の発生頻度は海外の報告では 10～12.5%と報告されている⁸⁻¹¹⁾。一方で本邦での両側性の報告例は少なく、加賀屋ら⁴⁾の本邦報告症例のまとめでは、50 症例中両側性は 2 例 (4%) と諸外国の報告と比して低い発生率であった。本邦の国内の症例報告は 1957 年～2015 年の間、自験例を含めてわずか 4 例であった^{2, 3, 12)}。

鼻唇嚢胞は WHO 分類では発育性非菌原性嚢胞に分類され、その発生機序には複数の説があり、未だ定説はない。顔面を形成する突起間に外胚葉が迷入して生じる胎生期発生異常説、胎生期の鼻涙管の遺残上皮から生じたとする胎生期器官残存説が主流とされてきた¹³⁾。しかし好発年齢が中高年で、若年者に生じた例がほとんど見られないことから胎生期の器官の遺残が原因とは考えにくいとの見解も近年見られ³⁾、腺排泄管の貯留を原因とする貯留嚢胞 (retention cyst) 説や鼻粘膜上皮の陥入によるものとする迷入嚢胞 (inclusion cyst) 説を支持する報告も散見される¹³⁾。また鼻形成術に伴う合併症として両側の鼻唇嚢胞が出現したとの報告もある¹⁴⁾。両側に発生した機序については今回の症例では明らかにできないが、嚢胞の裏打ち上皮

図 6 Photograph of excised cysts and histopathological findings (HE stain, original magnification: $\times 200$).
Cysts are separate each other (A, R: right lesion L: left lesion). Cyst walls are lined by pseudostratified ciliated columnar epithelium with goblet cells (B, C).
A: Excised cysts, B: right lesion, C: left lesion

は左右の病変共に多列線毛円柱上皮で裏装されており、鼻粘膜上皮および鼻涙管上皮と同様である。Parwani ら¹⁴⁾は鼻唇嚢胞の 10.6% が両側性であることから貯留嚢胞や迷入嚢胞が原因とは考えにくく、むしろ胎生期の上皮の遺残により生じている可能性を指摘している。われわれも Parwani らの意見に賛成である。

初診時より鼻翼の側方への拡大が顕著であったため、手術時に両側の鼻翼基部皮下組織を引き寄せることで鼻翼の形態修正を行い、術後の良好な鼻形態を回復できた。

結 論

今回われわれは両側性に発生した鼻唇嚢胞の 1 例を経験したので報告した。

引用文献

- 1) Kramer IRH, Pindborg JJ, et al: Histological typing of odontogenic tumors. 2nd Ed, Springer-Verlag 39-40, 1992.
- 2) 岡本圭一郎, 森田展雄, 他: 両側に発生した鼻唇嚢胞の 1 例. 日口診誌 12: 465-467, 1999.
- 3) 松野智宣, 萩野靖人, 他: 両側に生じた鼻齒槽嚢胞の 1 例.

- 日口外誌 43 : 742-744, 1997.
- 4) Kagaya M, Shigematsu H, et al: A case report of nasolabial cysts: review of the Japanese literature and report of a case. Jpn J Oral Diag/Oral Med 14 : 240-247, 2001.
 - 5) Bhaskar SN: Synosis of oral pathology. 6th Ed, Mosby Co, St Louis, 1969, pp. 227-228.
 - 6) Robinson RA and Vincent SD: Tumors and cysts of the jaws. American Registry of Pathology 37-38, 2001.
 - 7) Sumer AP, Celenk P, et al: Nasolabial cyst: case report with CT and MRI findings. Pathol Oral Radiol Endod 109 : e92-e94, 2010.
 - 8) Roed-Peterson: Nasolabial cysts: a presentation of five patients with review of the literature. Br J Oral Maxillofac Surg 7 : 84-95, 1969.
 - 9) El-Din K: Nasolabial cyst: a report of eight cases and a review of the literature. J Laryngol Otol 113 : 747-749, 1999.
 - 10) Vasconcelos RF, Souza PE, et al : Retrospective analysis of 15 cases of nasolabial cyst. Quintessence Int 30 : 629-632, 1999.
 - 11) Van Bruggen, Shear M, Du Preez et al: Nasolabial cyst: a report of 10 cases and review of the literature. J Dent Assoc S Afr 40 : 15-19, 1985.
 - 12) 柴田敏之, 山下徹郎, 他 : 特異な臨床病像を呈した鼻歯槽嚢胞の2例. 日口科誌 49 : 590-593, 2003.
 - 13) Parwani R, Parwani S, et al: Diagnosis and management of bilateral nasolabial cysts. J Oral Maxillofac Pathol 17 : 443-446, 2013.
 - 14) Ozdogan F, Ozel HE, et al: An unexpected rhinoplasty complication: bilateral nasolabial cyst. Aesth Plast Surg 39 : 888-891, 2015.
- 別冊請求先 : 河野辰行 〒 879-5593
大分県由布市挾間町医大ヶ丘 1-1
大分大学医学部歯科口腔外科学講座

A Case of Bilateral Nasolabial Cysts

Tatsuyuki KONO, Asami IKEDA, Shunichi YOSHIOKA,
Ayaka ABE, Noriaki YAMAMOTO, and Kenji KAWANO

Department of Dentistry and Oral-Maxillo-Facial Surgery, Faculty of Medicine, Oita University
(Chief: Prof. Kenji KAWANO)

J. Jpn. Oral Medicine, 22 : 41 ~ 45, 2016

Abstract : A case of bilateral nasolabial cysts in a 44-year-old female patient is reported. The patient was referred to our hospital with a chief complaint of swelling in the right alar base. Physical examination showed swelling with fluctuation in the oral vestibule of the bilateral maxillary canine areas. Yellow-colored fluid was aspirated by fine needle aspiration cytology. CT scan showed two cystic lesions separately existing in the alar bases of the both sides. Under a clinical diagnosis of bilateral nasolabial cysts, the lesions were enucleated under general anesthesia. Histopathologically, the cystic cavities were lined by pseudostratified ciliated columnar epithelium with goblet cells.

Key words : nasolabial cyst, nasoalveolar cyst, bilateral

Reprint requests to Tatsuyuki KONO, Department of Dentistry and Oral-Maxillo-Facial Surgery, Faculty of Medicine, Oita University, 1-1, Idaigaoka, Hasama, Yufu, Oita, 879-5593, Japan.

[Received February 10, 2016 : Accepted May 25, 2016]