

[臨床] 松本歯学 3 : 57~63, 1977

両側上顎洞に発生した benign mucosal cyst の1例

秋田隆造, 梅津 彰, 山本一郎, 小松正隆
山本眞紫, 浦出雅裕, 山岡 稔, 溝口幸二

松本歯科大学 口腔外科学第二講座 (主任 待田順治 教授)

林 俊子, 枝 重夫

松本歯科大学 口腔病理学講座 (主任 枝 重夫 教授)

Benign Mucosal Cysts Found in Bilateral Maxillary
Sinuses of a Boy ; a Case Report

RYUZO AKITA, AKIRA UMEZU, ICHIRO YAMAMOTO,

MASATAKA KOMATSU, MASASHI YAMAMOTO, MASAHIRO URADE,
MINORU YAMAOKA and KOHJI MIZOGUCHI

Department of Oral Surgery II, Matsumoto Dental College
(Chief: Prof. J. Machida)

TOSHIKO HAYASHI and SHIGEO EDA

Department of Oral Pathology, Matsumoto Dental College
(Chief: Prof. S. Eda)

Summary

A benign mucosal cyst (Paparella, 1963) appeared bilaterally in maxillary sinus of 15-year-old boy has been reported regarding its clinical and histopathological findings.

In addition, a review of the cyst of maxillary sinus especially its pathogenesis was carried out.

上顎洞粘膜由来の嚢胞として mucocele, mucoid retention cyst, mesothelial cyst. 等多くのものが挙げられているが、同一疾患に種々の名称をつけている場合もあり、その概念に混乱がみら

れる。1963年 Paparella¹⁹⁾ はこれらを mucocele, mucoid retention cyst, benign mucosal cyst の3種に分類した。我々は彼のいう benign mucosal cyst を両側上顎洞に認めた症例に遭遇したので、その概要と文献的考察を報告する。

本論文の要旨は第19回日本口腔科学会中部地方会(1976年11月28日)において発表された。

(1977年4月28日受理)

症 例

患者: S. K., 15才, 男性。

初診：昭和51年3月1日。

主訴：レントゲン写真上にみられた両側上顎洞内陰影の精査。

家族歴：特記することなし。

既往歴：アレルギー素因なし。その他特記することなし。

現病歴：某歯科医院で歯科治療のためパノラマ撮影をうけたところ、両側上顎洞底に半円形の不透過像を発見され、その精査治療を希望して当科を受診した。

現症 口腔外所見：顔貌は左右対称で腫脹、色調変化はみられない。左右顎下リンパ節は小指頭大のものを1個ずつ触知するが圧痛は認めない。鼻閉感、上顎洞部異和感、頭痛等はない。鼻鏡にて鼻腔側壁の膨隆、色調変化などを認めない。

口腔内所見：上下顎とも顎骨、歯槽骨、粘膜に視診、触診上異常所見はみられない。上顎歯牙では7|57が抜歯により欠損している。残存歯牙には打診痛、動揺を認めず、また1|以外は全て生活歯である。

X線所見：左右上顎洞底部に半円形の不透過像を認める。大きさは左側のものは直径約3cm、右側は直径約2cmである。不透過像周囲には白線はみられない。また、不透過像と歯根膜空隙との移行はみられない（Fig.1）。

臨床検査所見：昭和51年7月27日の一般血液検査において、白血球百分率で好酸球10%と増加を認めた以外に異常はない（Table 1）。

臨床診断：両側上顎洞内嚢胞。

処置：左側の嚢胞は昭和51年3月8日、右側は同年8月3日それぞれ摘出した。

術式および手術所見：両側とも犬歯窩より上顎洞前壁に達した。嚢胞は両側ともポリープ状に洞粘膜から突出していた。左側は洞内側壁中央部で自然孔のやや下に、右側は洞外側壁底部よりそれぞれ茎を有していた。嚢胞壁は菲薄で内容液がすけてみえた（Fig. 2）。

内容液は左右とも無色透明で、やや粘稠性を帯びていた。両側嚢胞とも茎基底部の洞粘膜とともに摘出した。なお、洞粘膜には異常がみられなかったため嚢胞基底部分以外の洞粘膜は保存した。

病理組織学的所見：左側の標本では上顎洞粘膜直下に大きな嚢胞が形成されており、そのため上顎洞内に大きく隆起している（Fig. 3-A）。これ

を詳細に観察すると、上顎洞粘膜である多列絨毛上皮は明瞭であるが、直下の嚢胞内壁には上皮の裏装は全く認めることができない（Fig. 3-B）。中性多糖類のためのPAS染色ならびに酸性ムコ多糖類のためのalcian blue（PH 7.0）染色を施してみると多列絨毛上皮細胞内にはPAS陽性物質が存在していたが、嚢胞内は何らの反応も示さなかった（Fig. 3-C）。他方右側の上顎洞粘膜下

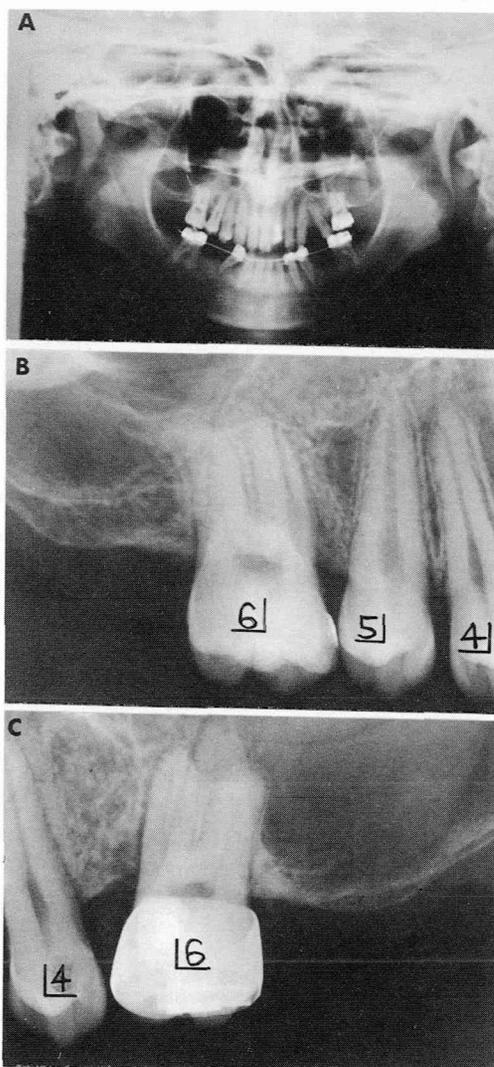


Fig. 1. A : Panoramic roentgenograph.

Hemispherical and homogenous figures are seen on the floors of bilateral maxillary sinuses. These figures have no whiteline.

B, C : Dental roentgenographs of the right(B) and left(C) maxillary molar regions.

Table 1 Hematological examination

	76/3/9	76/7/27
Red blood cell	498	550 ×10 ⁴ /mm ³
White blood cell	6500	5500 /mm ³
neutrophil	50	53%
eosinophil	1	10%
basophil	1	0%
lymphocyte	43	37%
monocyte	5	0%
Hemoglobin	16.0	14.2 g/dl
Hematocrit	46	46%

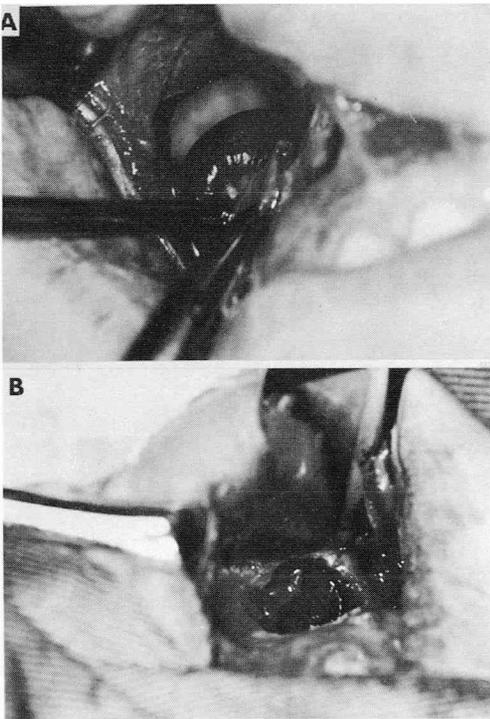


Fig. 2. Cysts exposed by removal of anterior antral-walls during operation.

A : right side
B : left side

に形成された嚢胞には上皮の裏装は反対側のそれと同様に全くこれを観察することができない。粘膜の多列繊毛上皮は一部消失しており、粘膜下に

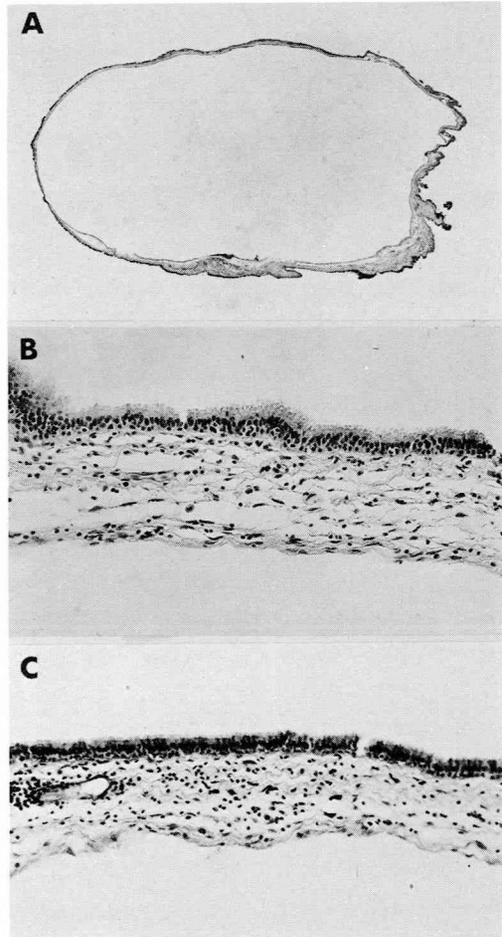


Fig. 3. Histopathological features of the left side cyst.

A : The whole cyst, H-E stain (10x)
B : Enlarged picture from a part of A. Upward is sinus cavity, downward is cyst. (170x)
C : The cyst wall stained with PAS stain (170x)

は毛細血管の拡張、リンパ球および好酸球の軽度な浸潤が認められる (Fig. 4) .

病理診断 : benign mucosal cyst.

考 按

Benign mucosal cyst の成立機転には種々の説があるが未だ確定的なものはない。

McGregor¹⁴⁾ は感染性または血管運動性に粘膜下結合織に組織液が貯溜すると唱えた。これに対し、Lindsay¹²⁾ は結核性胸膜炎の貯溜液やある種

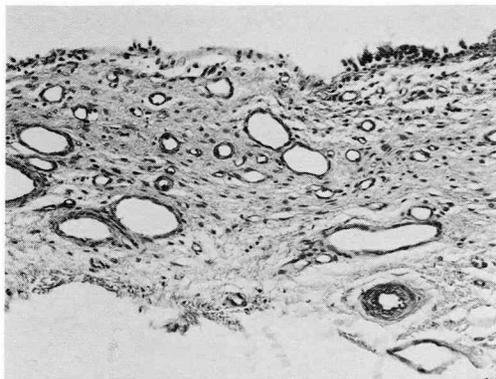


Fig. 4. Histopathological feature of the wall of the right side cyst. PAS stain (170×)

の膿胸が無菌的であることから、内容液が無菌的であったとしても細菌の役割を除外できないとし、benign mucosal cyst の内容液形成には細菌毒素、無酸素血症等の影響が必要であると考えた。続いて Mills¹⁶⁾ が洞粘膜由来の多数の小貯溜嚢胞が破裂して粘液が結合織に流出する結果、反応性に滲出液が産生されて大きな嚢胞が形成されるという機転を唱えた。さらに彼は McGregor¹⁴⁾ のいう感染によるとする説では、内容液が無菌的であること、充血・化膿等の炎症徴候がみられないこと、破裂により内容液が流出したのち再発がみられることを説明することができないとし、これに反論した。

この種の嚢胞の成因にアレルギーを主因と考える説もあり^{6) 7)}、木村ら⁸⁾ は本疾患患者のアレルギー検査の結果 4 例中 3 例にアトピーアレルギーの関与を推測している。一方、内容液が滲出液成分に近く^{4) 5)}、アレルギー性炎の場合の漏出液とは異っていることから、アレルギー説を否定する意見もある。さらに Mills¹⁶⁾ 説では小貯溜嚢胞の発生の誘因に慢性上顎洞炎が考えられているが、この慢性上顎洞炎の原因としてアレルギーの関与が考えられることから^{24) 25)}、アレルギーは直接原因ではないにしても間接の原因として否定することはできないとも考えられる。嚢胞内容液分析の報告では血清、滲出液等との比較を行っているものが多く、ムチンについての分析を行っているものは石川ら⁵⁾ が報告している以外みられない。Mills¹⁶⁾ 説では反応性に滲出液が貯溜するとされているが、その原因となった粘液腺は分泌を続け

ることから、粘液の分泌が多く反応性の滲出液量が少い場合も考えられる。部位及び粘液排出量は異なるが、唾液腺の粘液嚢胞及びガマ腫では内容液は粘液であり黄色漿液性の液体であることはない。このことから、ムチンにより直接に炎症が惹起されて滲出液が貯溜するということは考えにくい。しかし友田^{24) 25)} はアレルギー状態にある家兎の上顎洞内にムチンを注入することにより洞粘膜にアレルギー性変化が生じることを報告しており、洞粘膜下に流出したムチンが滲出を促すことはアレルギー状態下においては十分考えられる。こうした機転を考えるならば内容液の性状は粘液性のものから漿液性のものまで種々な移行型があるはずである。

Benign mucosal cyst は本症例のように通常無症状であるとされている。稀にみられる症状として洞内の重い感じ、同側歯牙の疼痛、頭痛、発熱、不安、焦燥感、関節痛などが挙げられている^{11) 19)}。しかし、これらの症状と本疾患とが真に関連しているかどうかは不明である。Benign mucosal cyst が破裂した場合に黄色の液体が鼻孔から流出することがあるが、これは本疾患に特異的な症状といえる。

その X 線像は洞底の半円形、ドーム状の均一な不透過像として表現されている^{10) 21) 23)}。X 線的に鑑別すべき疾患として洞内へ発育した歯性嚢胞、洞内ポリープなどが挙げられている。洞内に発育した歯性嚢胞では周囲に一層の不透過像を有した透過像としてみられる²³⁾。Poyton ら²⁰⁾ はこれに加えて benign mucosal cyst の場合には歯槽骨像に異常がないこと、洞底に連続性がみられること等を歯性嚢胞との鑑別点として挙げている。洞内ポリープの場合にはその不透過性が均一ではなく、またその不透過度が benign mucosal cyst の場合よりも強いとされている¹⁹⁾。この様に洞内ポリープや歯性嚢胞との X 線の鑑別は可能だが洞原発の他の嚢胞との鑑別は容易ではない。上顎洞の mucocele では benign mucosal cyst と異り甲介の膨隆、眼球突出、失明、歯牙動揺、上顎の下方への膨隆、顔面腫脹等の明確な症状が出現する^{11) 17) 27)}。しかし、これらの症状は mucocele が大きくなって周囲組織を圧迫していった場合に出現するものであり、洞内にとどまっている場合には症状はほとんどないと考えられる。したがって、上

Table 2 Water and electrolyte concentration

	Serum	Transudates	Exudate	Fluid of benign mucosal cyst
Water	937.3	967.4	---	919.3 g/l
Specific gravity	---	---	1.016	1.012
Total protein	66.6	3.09	41.0	65.0 g/l
A/G	1.80	---	---	---
Cl	100.5	103.2	94.6	110.4 mEq/l
Na	135.5	139.0	128.0	149.0
K	4.29	3.34	5.60	4.55
Ca	2.65	1.92	2.22	---

(cited from Lindsay¹²)

Table 3 Incidence of the benign mucosal cyst

	Year	Number	%
Millhon	1944	24/600	2.5
Grossman	1944	6/80	7.5
Ibsen	1945	---	2.0
Wright	1946	---	5.0
Kiuamaki	1961	---	10.0
Mattila	1965	---	7.0
Lilly	1968	32/1285	3.7
Ishikawa	1975	48/529	9.0

顎洞内のこれら嚢胞を臨床的に鑑別することは困難であり、主として病理組織像と内容液の分析によらなくてはならない。Benign mucosal cystでは嚢胞外面を上顎洞粘膜上皮が覆い、内面は結合線維束よりなっており上皮はない。その内容液は黄色漿液性であり、成分は血漿に近く漏出液よりも滲出液だと考えられており (Table 2), 採取するとゲル化する性質を有している。これに対して mucocoele や retention cyst では壁の内面に上皮を有しており内容液は粘液である。この2つの鑑別点は絶対的なものではなく、内面に上皮がなく粘液を有している例や、逆に内面に上皮があって黄色漿液性の液体を有している例もある。石川ら⁵⁾は内容液の分析と病理像との関係をしらべ、内容液分析により診断すべきであると結論づけた。ところで本症例を病理組織学的にみると benign mucosal cyst と診断される。

これと鑑別すべき疾患としての mucocoele は発症機転に主として洞粘膜の嚢胞様変性が考えられていること^{3) 8) 9) 13) 18) 26)}及び上顎洞での存否が問題になる程稀であること^{15) 22)}, また mucoïd retention cyst は慢性洞炎の手術時に発見される小さなものであり、洞炎を伴わずに発生するかどうか、このように大きなものが存在するかどうか等の点からいずれも疑問がある。他方、嚢胞内に組織化学的に酸性ムコ多糖類を証明できなかったが、これは嚢胞摘出手術中に内容液が流出したこと、および標本作製中に溶出したことも考慮するならば、嚢胞内に粘液が存在しなかったと安易に判断することはできない。しかしたとえ内容液が粘液性であったとしても、発症機転に前述の Mills 説¹⁶⁾を考えれば、benign mucosal cyst という診断は妥当だと考えられる。

上顎洞粘膜由来の嚢胞の頻度は benign mucosal cyst では2%ないし10%みられる (Table 3)。これらの数値はすべてX線的に洞内嚢胞の所見にみられたものから割出したものであるから、厳密に言えば retention cyst や mucocoele が含まれている可能性があるが、この2つの嚢胞の特徴及び頻度を考慮すると、これらの値は benign mucosal cyst の頻度にはほぼ一致すると考えられる。これらの数値から本症例のように両側性に存在する頻度を推定すると、0.01%ないし0.25%と考えられ、かなり低い値となる。

このような嚢胞がポリープ状に形成される機転については報告がない。本症例は両側ともポリープ状のものであったが、そのレントゲン像は通常の benign mucosal cyst の所見と一致していた。

石川⁵⁾らは48例の上顎洞嚢胞様病変のレ線写真の分析から、それらをドーム型のもの6例、半球状41例、ポリープ状に側壁についているもの1例に分類している。本症例のように実際はポリープ状であるにもかかわらず、ドーム型、半球型に分類されているものも多数あるのではないかと思われる。Bret-Day²⁾はX線的にこの種の嚢胞と洞底のなす角度が鋭角であるとしており、本嚢胞の基底は嚢胞本体よりも幅が狭くポリープ状の形が推定される。このような形態をとることは、洞粘膜の特性によるものか発症機転に関係したものであるのかは不明である。本疾患の処置としては、無症状であることが多く自然消失する例もあることから、放置してもよいとする意見がある²⁾。Paparella¹⁶⁾は下鼻道より上顎洞カニューレや前頭洞カニューレを挿入し内容を吸引して嚢胞を破壊する方法を提唱し、再発した時のみ手術を適応とした。しかし無症状とはいえ長期間存在すると、頭痛、関節炎等の症状が出現する可能性もあり、病巣感染の原因となることも考えられ¹⁴⁾、保存的療養では再発率が高いこともあって、手術的方法を第1選択としてもよいと考えられる。

む す び

Benign mucosal cyst が15才の男性の上顎洞に両側性に現われたまれな症例を報告した。併せて本嚢胞の発症機転等について考察をおこなった。

文 献

- 1) Bloom, D.L. (1965) Mucocelles of the maxillary and sphenoid sinuses. *Radiology*, 85: 1103—1110.
- 2) Bret-Day, R.C. (1960) Secretory cyst of the maxillary antrum presenting with oral symptoms. *Brit. Dent. J.* 109: 268—270.
- 3) Doyle, C. S. and Simeone, F. A. (1972) Mucoccele of the sphenoid sinus with bilateral internal carotid occlusion. *J. Neurosurg.* 36: 351—354.
- 4) Eichelberger, L. and Lindsay, J. R. (1941) Chemical composition of fluids from benign cysts of the antrum. *Proc. Soc. Exp. Biol. Med.* 48: 191—195.
- 5) 石川武憲, 森沢宣生, 田中昭裕, 河村順一, 吉岡濟 (1975) 上顎洞粘膜に由来発生する嚢胞—“mucoïd retention cyst” と “hydrocele” に関する問題点について—。 *口科誌*, 24: 273—286.
- 6) Iskhaki, Y. B. (1967) On the morphogenesis of cysts of the maxillary sinus. *Zh. Ushn. Gorl. Bolez. (Kiev)* 27: 36.
- 7) Kern, R. A. and Schneck, H. P. (1933) Allergy a constant factor in the etiology of so-called mucous nasal polyp. *J. Allergy*, 4: 485—497.
- 8) 木村徹男, 杉浦昭克, 成松英明 (1975) 嚢胞形成性上顎洞炎について—主として臨床および組織学的所見から。 *日耳鼻*, 78: 721—728.
- 9) 北村武, 中川真五郎 (1967) 上顎洞ムコケーレの成立機転と診断について。 *日耳鼻*, 60: 1315—1322.
- 10) Kwapis, B. W. and Whitten, J. B. (1971) Mucosal cysts of the maxillary sinus. *J. Oral Surg.* 29: 561—566.
- 11) Lilly, G. E., Cutcher, J. L. and Steiner, M. (1968) Spherical shadows within the maxillary antrum. *J. oral Med.* 23: 19—21.
- 12) Lindsay, J. R. (1942) Nonsecreting cysts of the maxillary sinus mucosa. *Laryngoscope*, 52: 84—100.
- 13) Lobell, A. (1927) Relationship between mucocelles and cysts. *Archives Otolaryngol.* 6: 546—551.
- 14) McGregor, G. W. (1928) The formation and histologic structure of cysts of the maxillary sinus. *Archives Otolaryngol.* 8: 505—519.
- 15) Millhon, J. A. and Henry, B. (1944) Cysts arising from the mucosa of the maxillary sinus as seen in the dental roentgenogram. *Am. J. Orthodont. (Oral Surg. Sect.)* 30: 12—15.
- 16) Mills, C. P. (1959) Secretory cysts of the maxillary antrum and their relation to the development of antrochoanal polypi. *J. Laryngol.* 73: 324—334.
- 17) Montgomery, W. W. (1964) Mucoccele of the maxillary sinus causing enophthalmos. *Eye Ear Nose Throat Month.* 43: 41—48.
- 18) Norman, P. S. and Yanagisawa, E. (1964) Mucoccele of sphenoid sinus. *Archives Otolaryngol.* 79: 646—656.
- 19) Paparella, M. M. (1963) Mucosal cyst of the maxillary sinus. *Archives Otolaryngol.* 77: 650—657.
- 20) Poyton, H. G. and Stoneman, D. W. (1961) Benign cysts of the maxillary antrum. *Canadian Dent. Assoc. J.* 27: 289—292.
- 21) Sammartino, F. J. (1965) Radiographic appearance of a mucoïd retention cyst. Report of a case. *Oral Surg.* 20: 454—455.
- 22) Skillern, R. (1916) The accessory sinuses of the

- nose. J. B. Lippincott. Co., Philadelphia, second edition p.136.
- 23) Stafne, E. C. and Gibilisco, J. A. (1975) Oral roentgenographic diagnosis. W. B. Saunders Company, Philadelphia, London, Toronto, fourth edition p.108.
- 24) 友田洋一 (1968) 副鼻腔の慢性炎症並びに粘液囊腫に関する実験的研究 (第一編). 日耳鼻, 61 : 539—547.
- 25) 友田洋一 (1968) 副鼻腔の慢性炎症並びに粘液囊腫に関する実験的研究 (第二編). 日耳鼻, 61 : 548—558.
- 26) Wolfowitz, B. L. and Solomon, A. (1972) Mucoceles of the frontal ethmoid sinuses. J. Laryngol. Otol. 86 : 79—82.
- 27) Zizmor, J. and Ganz, A. R. (1972) Mucoceles of paranasal sinuses. New York State J. Med. 72 : 1710—1715.