

症例報告

上顎洞に発生した菌原性粘液腫に医科歯科連携で対応した1症例

安丸 功 基¹⁾ 鶴 飼 孝^{1,2)} 小 関 優 作¹⁾
照 崎 伶 奈¹⁾ 田 中 利 佳¹⁾ 角 忠 輝^{1,2,3)}

抄録：今回，上顎洞に発生した比較的まれな疾患である菌原性粘液腫に対し，医科歯科連携による治療を経験したので若干の文献的考察と合わせ報告する。患者は33歳女性で，右側頬部の疼痛を主訴に長崎大学病院耳鼻咽喉科を受診し，右側菌性上顎洞炎疑いで当科紹介となった。視診，電気菌髄診断，X線写真，CBCT画像では菌性上顎洞炎を疑う所見を認めず，耳鼻咽喉科へ菌性上顎洞炎の可能性は低いことを連絡した。その後，耳鼻咽喉科にて右側上顎腫瘍の疑いで生検が行われ，病理診断の結果，上顎洞に発生した粘液腫と診断された。耳鼻咽喉科にて摘出手術が行われた際に上顎右側第二大臼歯の歯根が腫瘍と癒着していることが確認され菌原性粘液腫と診断された。その後，当科にて上顎右側第二大臼歯の抜歯を行った。抜歯時に上顎洞との交通が確認され，抜歯後3週間経過しても瘻孔は閉鎖しなかった。摘出手術後から継続していた鼻洗浄が原因ではないかと考え，耳鼻咽喉科へ鼻洗浄の一時中断を依頼し，鼻洗浄中断後1週間で瘻孔は著明に閉鎖傾向を示した。術後7か月を経過した現在，腫瘍の再発は認めず経過良好である。しかし，顎骨粘液腫の手術後の再発率は高く2年以内の再発が多いと報告されているため，引き続き経過観察が必要である。今回の症例を通して良好な治療結果を得るために医科歯科が共同で適切な診断を下し，協力して治療することの重要性を再認識できた。

キーワード：菌原性粘液腫 医科歯科連携 上顎洞瘻 鼻洗浄

緒 言

超高齢社会に突入し全身疾患を抱えた歯科受診者数は増加の一途をたどっている。そうした中，医科歯科連携は必要不可欠な医療となってきた。上顎洞の疾患は歯科領域と耳鼻咽喉科領域の接点の1つであり，適切な治療を行うためにはその疾患が菌性によるものなのか，鼻性によるものなのかの診断ならびに治療方針の決定が重要となる。今回，発生頻度が菌原性腫瘍のなかで2.7%と比較的まれな疾患である菌原性粘液腫に対し¹⁾，医科歯科連携による治療を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：33歳，女性。

初診日：2018年5月9日。

主訴：右側頬部の疼痛。

現病歴：2018年4月，上顎右側臼歯部の自発痛を主訴に近医歯科を受診しクレンジングの診断の下ナイトガードによる治療を受けるも症状は改善せず，近医耳鼻咽喉科へ紹介された。近医耳鼻咽喉科にて投薬治療が行われたが，症状が悪化したため，5月に右側一側性副鼻腔炎で長崎大学病院耳鼻咽喉科へ紹介とな

り，それまでの経過とCBCT撮影の結果より菌性上顎洞炎疑いで当科紹介となった。

既往歴：シェーグレン症候群，喘息，花粉症。

家族歴：特記事項なし。

現症：上顎右側第二小臼歯，第一大臼歯，第二大臼歯にわずかな自発痛と打診時の違和感を認めた。電気菌髄診断にて菌髄反応の低下を認めたが，う蝕や修復物はなく，歯に明らかな原因を認めなかった。また歯周ポケットの深さは3mm以下であった。口内法X線写真にて，う蝕様所見は認められなかったが(図1A)，右側上顎洞の不透過性亢進を認めた(図1B)。CBCTでは，右側上顎洞の前壁，後壁，内側壁の骨は破壊されており，上顎洞内が軟組織濃度の構造物で満たされていた(図1C)。

診 断

当科にて電気菌髄診断，口内法X線写真，CBCT画像より明らかな菌性上顎洞炎を疑う所見は認められなかったため，耳鼻咽喉科へ菌性上顎洞炎の可能性は低いと判断した旨を伝えた。その後，耳鼻咽喉科にて造影MRI，造影CT(図2)撮影が行われ，以前のCBCT画像(図1C)と併せて右側上顎洞腫瘍疑いと診断された。

¹⁾ 長崎大学病院総合歯科診療部 (主任：角 忠輝教授)

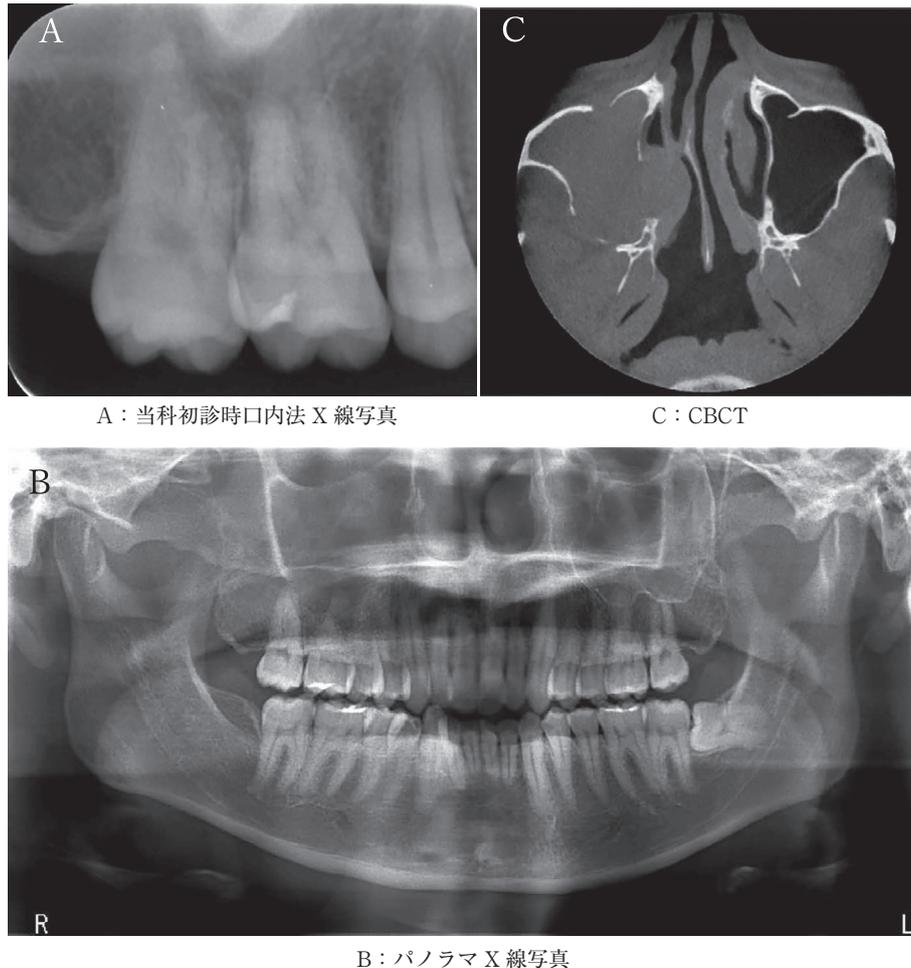
²⁾ 長崎大学病院医療教育開発センター (歯科教育研修部門長：角 忠輝教授)

³⁾ 長崎大学歯学部総合歯科臨床教育学 (主任：角 忠輝教授)

¹⁾ Department of General Dentistry, Nagasaki University Hospital (Chief: Prof. Tadateru Sumi) 1-7-1 Sakamoto, Nagasaki-shi, Nagasaki 852-8501, Japan.

²⁾ Medical Education Development Center, Nagasaki University Hospital (Chief of dental education section: Prof. Tadateru Sumi)

³⁾ Department of Clinical Education in General Dentistry, School of Dentistry, Nagasaki University (Chief: Prof. Tadateru Sumi)



A : 当科初診時口内法 X 線写真

C : CBCT

B : パノラマ X 線写真

図 1

A : 口内法 X 線写真にてう蝕様所見は認めない。
 B : パノラマ X 線写真では右側上顎洞の不透過性の亢進を認める。
 C : CBCT にて上顎洞内が軟組織濃度の構造物で満たされている。

臨床診断名：右側上顎洞腫瘍疑い。

その後、耳鼻咽喉科にて確定診断目的で全身麻酔下での内視鏡下腫瘍生検が実施された。しかし、病理診断が困難であったため、国立がん研究センターに病理診断を依頼した。

病理組織学的所見：細いスリット状、吻合上の毛細血管の増生と粘液腫状の基質からなる間質を有する腫瘍組織を認めた。腫瘍細胞は疎に分布し、短紡錘形の核を有し、核クロマチンは濃染し、核小体は目立たなかった。軽度の核の大小不同をみるが、核分裂像は不明瞭であり、核異形度は低かった。免疫組織化学的染色では、腫瘍細胞においてNSE(-), S100(-), CD34(-), β -catenin(+); cytoplasmic, AR(-), CD31(-), MIB-1(+); 30% (hot spot) であった。

病理組織学的診断：粘液腫。

治療方針

2週間後、再度電気歯髓診断をしたところ、上顎右側第二小白歯、第一大白歯、第二大白歯の歯髓反応は認めなかった。根管治療が必用となったが、腫瘍疑いのために腫瘍摘出手術後に根管治療を行うこととした。

経過

6月、MRI、造影CT撮影が行われ、5月撮影時の所見と比較して腫瘍性病変の増大傾向を認めた(図3)。7月、国立がん研究センターの病理診断の結果、粘液腫の確定診断が得られたため、耳鼻咽喉科にてDenker-和辻法に準ずる右側上顎洞粘液腫摘出搔爬術が施行された。その際に上顎右側第二大白歯の歯根が腫瘍と癒着していることが確認されたため、術中診断で歯原性粘液腫と診断された。その後、耳鼻咽喉科から当



図2 造影CT (2018年5月18日)
右側上顎洞全体に拡大した腫瘍性病変を認める。

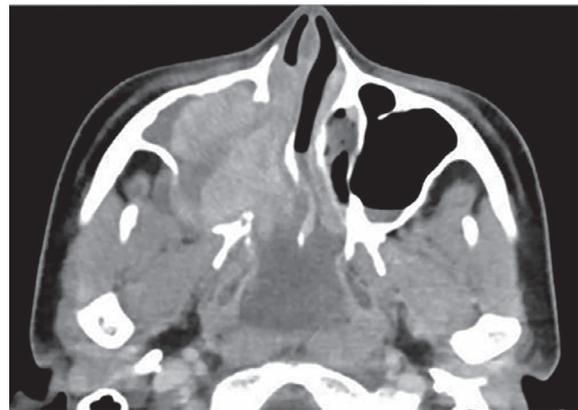


図3 造影CT (2018年6月28日)
前回撮影時 (5月18日) と比較し鼻腔内での拡大と上咽頭への進展を認める。



図4 抜歯窩の治療経過

- A: 抜歯から1週間後, 上顎洞瘻を認める。
B: 抜歯後1か月 (鼻洗浄中断後1週間), ゾンデは通るが患者は鼻漏を感じなくなった。
C: 抜歯後2か月, 上顎洞瘻は完全に閉鎖した。

科へ上顎右側第二大臼歯の抜歯依頼があり, 8月に上顎右側第二大臼歯の抜歯を行った。抜歯1週間後, 抜歯窩に上顎洞瘻を認めたため (図4A), 局所止血材を填入し穿孔部を閉鎖する上顎洞瘻閉鎖術を施行したが, 3週間経過しても瘻孔は閉鎖しなかった。その原因として, 腫瘍摘出手術後から毎日患者が継続していた鼻洗浄を疑い, 耳鼻咽喉科へ鼻洗浄の一時中断を依頼した。中断後1週間で瘻孔は閉鎖傾向を示したため (図4B), 鼻洗浄を再開したが, その約1か月後には完全に閉鎖していた (図4C)。その後, 歯髄が失活していた上顎右側第二小臼歯と第一大臼歯の根管治療を行った。2019年2月にCT撮影を行ったが再発は認められなかった (図5)。

考 察

今回, 比較的まれな疾患である上顎洞の歯原性粘液腫に対し診断から治療まで医科歯科間で連携をとることで患者利益に寄与することができた。具体的には, 診断において, 歯性上顎洞炎疑いで耳鼻咽喉科より紹介を受けたが, 歯髄に生活反応の低下はあるものの,

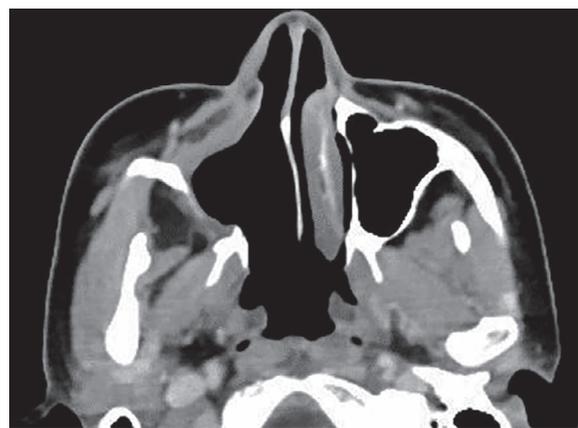


図5 術後7か月のCT (2019年2月1日)
腫瘍の再発は認められず, 上顎洞内はair spaceで占められている。

それ以外に異常所見を認めなかったため, 歯性上顎洞炎の可能性は低いことを耳鼻咽喉科主治医へ連絡した。これが炎症性疾患ではなく腫瘍疾患であることの診断の一助となった。また, 治療においては, 抜歯後

表 1 上顎に進展した菌原性粘液腫の報

| 著者 | 報告年 | 患者年齢 | 性別 | 術式 | アプローチ | 再発 |
|--------------------|------|------|----|------------------|--------|----|
| 中島ら ⁹⁾ | 2003 | 31 | 男性 | 上顎全摘出術 | 顔面皮膚切開 | なし |
| 三澤ら ¹⁰⁾ | 2004 | 34 | 男性 | 上顎部分切除術 | 顔面皮膚切開 | なし |
| 柳田ら ⁸⁾ | 2005 | 13 | 男性 | 腫瘍摘出搔爬と抜歯 | 口腔内 | なし |
| 山村ら ¹¹⁾ | 2006 | 45 | 女性 | 腫瘍摘出搔爬 | 口腔内 | なし |
| 山本ら ¹²⁾ | 2008 | 15 | 男性 | 腫瘍摘出搔爬 | 鼻内 | あり |
| 田村ら ¹³⁾ | 2009 | 26 | 女性 | 腫瘍摘出搔爬 | 口腔内 | なし |
| 安居ら ¹⁴⁾ | 2010 | 16 | 男性 | 腫瘍摘出術と上顎骨部分切除と抜歯 | 口腔内 | なし |
| 御厨ら ¹⁵⁾ | 2017 | 41 | 男性 | 腫瘍摘出術と上顎骨部分切除と抜歯 | 口腔内 | なし |
| 本症例 | 2018 | 33 | 女性 | 腫瘍摘出搔爬 | 口腔内 | |

に上顎洞瘻を認め、抜歯後3週間経過しても瘻孔は閉鎖しなかった。腫瘍摘出手術後に毎日行われていた鼻洗浄による流水が治癒阻害を引き起こしていると考えられたため、耳鼻咽喉科へ鼻洗浄の中断を依頼した。中断後、瘻孔は縮小して1週間後には患者が鼻漏を感じない程度まで閉鎖し、日常生活に支障をきたさなくなったため、耳鼻咽喉科へ鼻洗浄の再開を依頼した。これにより、以後順調な治療経過をたどることができた。今回の症例を通し、医科歯科間で情報を共有したことが適切な診断へとつながったばかりでなく、連携のとれた治療により上顎洞瘻の治癒が促進され患者の満足度を高めることにもつながった。

菌性上顎洞炎の治療において原因菌の抜去を行い上顎洞と交通した場合、その多くは自然に閉鎖する。閉鎖しない場合は生理的食塩水を用いて抜歯窩から上顎洞内の洗浄を行う。これにより貯留した膿汁や分泌物の排出を行い、粘膜上皮の正常化を促す²⁾。洗浄時には排膿量を観察し、週3回程度洗浄を行い、洗浄以外の時には保護床を用いる²⁾。しかし、この繰り返しの洗浄により交通路上皮化が進み瘻孔が残ることもあり、その場合、粘膜上皮の正常化後に瘻孔閉鎖術が行われる²⁾。鼻洗浄に抗炎症効果を期待はできるが²⁾、今回のように上顎洞と抜歯窩が交通しているような場合には、強い洗浄を続けることで交通部分の上皮化により瘻孔を形成し閉鎖不全を起こす可能性が考えられる。そして完全な瘻孔の上皮化が起きてしまうと自然閉鎖が困難で、頬側歯肉骨膜弁閉鎖法、口蓋側粘膜骨膜弁閉鎖法や口蓋島状弁閉鎖法などの閉鎖術が必要となり³⁾、患者に大きな苦痛を与えることとなる。今回、鼻洗浄が抜歯窩の治癒不全を誘発している可能性があり鼻洗浄を一時的に中止したことで、期待通り抜歯窩の治癒を促進することができたと考えられる。

菌原性粘液腫の発生原因は不明な場合が多く、20～30代の女性に発症しやすい⁴⁾。良性腫瘍ではあるが、局所浸潤性に発育するため、摘出搔爬では2年以内に再発しやすく^{5,6)}、一般的には顎骨など周囲組織

を含めた切除が推奨され⁷⁾、切除症例が報告されている⁸⁻¹¹⁾。しかし、いくつかの症例では、若年者における上顎洞に広範囲に進展した粘液腫において形態と機能の温存を考慮し腫瘍の摘出および搔爬のみを行い経過良好であったことが報告されている¹²⁻¹⁵⁾(表1)。そのため本症例においても形態と機能の温存を考慮して腫瘍の摘出と搔爬に留め、顎骨の切除は行われなかった。術後7か月を経過した現在まで、再発は認められず経過良好である。しかし、前述のとおり再発リスクがあるため今後も経過観察を継続していく必要がある。

結 論

今回、比較的まれな疾患である菌原性粘液腫に対し診断から治療まで医科歯科間で連携をとることで患者利益に寄与することができた。

利益相反

本論文において開示すべき利益相反 (IOC) はない。

倫理規約

ヘルシンキ宣言を遵守し、症例報告として発表することについて患者からインフォームドコンセントを得ている。

謝 辞

本症例においてご指導ならび治療にご協力を賜りました長崎大学病院口腔管理センター河井洋祐先生、耳鼻咽喉科森彩加先生に深謝いたします。

文 献

- 1) 相馬 陽, 高木律男, 星名秀行, 宮浦靖司, 長島克弘, 他. 菌原性腫瘍の臨床統計的検討: 23年間110例について. 日口腔外会誌 2001; 47: 109-112.
- 2) 吉田奈穂子. 歯科からみた菌性上顎洞炎. 耳鼻展望 2006; 49: 372-380.
- 3) 朝倉昭人. 口腔上顎洞瘻閉鎖術, 炎症の外科的処置. 図説口腔外科手術学中巻. 第1版, 東京: 医歯薬出版株式

- 会社；1988. 375-393.
- 4) 木原俊之, 原田博史, 楠川仁悟, 亀山忠光. 顎骨内粘液腫6例の臨床および組織学的研究. 日口腔外会誌 1998 ; 47 : 244-249.
 - 5) Lo Muzio L, Nocini P, Favia G, Procaccini M, Mignogna MD. Odontogenic myxoma of the jaws: a clinical, radiological, immunohistochemical, and ultrastructural study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 1996 ; 82 : 426-433.
 - 6) Keszler A, Dominguez FV, Giannunzio G. Myxoma in childhood: an analysis of 10 cases. J Oral Maxillofac Surg 1995 ; 53 : 518-521.
 - 7) Harder F. Myxomas of the jaws. Int J Oral Surg 1978 ; 7 : 148-155.
 - 8) 柳田 恵, 梅田正博, 石田佳毅, 鈴木泰明, 綿谷早苗, 他. 上顎洞に進展しセメント質様石灰化物を伴った歯原性粘液腫の1例. 日口腔外会誌 2005 ; 51 : 610-613.
 - 9) 中島敏文, 近藤壽郎, 濱田良樹, 石井宏昭, 金村弘成, 他. 高度に進展した上顎歯原性粘液腫の一例. 鶴見歯学 2003 ; 29 : 159-163.
 - 10) 三澤常美, 森 千里, 渡辺麻紀子, 河西八郎. 上顎洞内まで及ぶ歯原性粘液線維腫の1例. 山梨中病年報 2004 ; 31 : 65-67.
 - 11) 山村幸江, 須納瀬弘, 吉原俊雄. 上顎洞粘液腫の1例. 耳鼻・頭頸外科 2006 ; 78 : 547-550.
 - 12) 山本耕司, 加藤孝邦, 鴻 信義, 吉村 剛. 上顎に発生した歯原性粘液腫の1症例. 耳鼻展望 2008 ; 51 : 140-144.
 - 13) 田村 敦, 山下 拓, 塩谷彰浩. 上顎洞に進展した歯原性粘液腫の1例. 耳鼻・頭頸外科 2009 ; 81 : 535-538.
 - 14) 安居孝純, 鬼澤勝弘, 兵藤朋子, 内山公男, 田中陽一, 他. 上顎洞を占拠した歯原性粘液腫の1例. 日口腔外会誌 2010 ; 56 : 80-84.
 - 15) 御厨垂希, 川住薫子, 桐山 健. 上顎洞へ広範に進展した歯原性粘液腫の一例. 広島病医誌 2018 ; 49 : 41-48.

著者への連絡先

鷗 飼 孝

〒852-8501 長崎県長崎市坂本1丁目7-1

医療教育開発センター

TEL 095-819-7707

E-mail : ukai@nagasaki-u.ac.jp

Case of odontogenic myxoma developing in maxillary sinus treated by the collaboration of the medical and dental professions

Koki Yasumaru¹⁾, Takashi Ukai^{1,2)}, Yusaku Koseki¹⁾,
Reina Terusaki¹⁾, Rika Tanaka¹⁾ and Tadateru Sumi^{1,2,3)}

¹⁾ Department of General Dentistry, Nagasaki University Hospital

²⁾ Medical Education Development Center, Nagasaki University Hospital

³⁾ Department of Clinical Education in General Dentistry, School of Dentistry, Nagasaki University

Abstract : Odontogenic myxoma is a relatively rare disease, 2.7% of odontogenic tumors. A patient, 33-years-old female, came to the Nagasaki University Hospital with a chief complaint of pain on the right cheek. She was referred to our department with suspected odontogenic maxillary sinusitis. Using the data of several dental examinations, we judged that the possibility of dental maxillary sinusitis is low. A biopsy was performed on the suspicion of the right upper jaw tumor at the Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery. As a result of pathological diagnosis, it was diagnosed as a myxoma in the maxillary sinus. The surgery to remove the tumor was performed at the Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery. It was confirmed that the root of the maxillary right second molar was adhered to the tumor, so that the molar was extracted at our department. A traffic with the maxillary sinus was confirmed at the time of tooth extraction. The fistula did not close even 3 weeks after tooth extraction. We suspected the nasal irrigation that had been continued after removal of the tumor as a cause of the fistula. We therefore requested the temporary discontinuance of nasal irrigation to the Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery. The fistula sharply reduced at one week after the interruption. The tumor is 7 months after surgery and no recurrence has been observed. We realized an importance of collaborated treatment between medical and dental through this case, odontogenic myxoma in the maxillary sinus.

Key words : odontogenic myxoma, the collaboration of the medical and dental professions, oroantral fistula, nasal irrigation