14 歳男児に生じた両側性顎下腺導管唾石症の 1 例

濱田 正和・清水 英孝・光野 史彦
榊井 敦史・奥長 秀介・由良 義明

A case of bilateral sialolithiasis of the submandibular ducts in a 14-year-old boy

HAMADA Masakazu・SHIMIZU Hidetaka・KOUNO Fumihiko
MASUI Atsushi・OKUNAGA Syusuke・YURA Yoshiaki

Abstract: Sialolithiasis is caused by the formation of a calcified structure within salivary ducts or glands. Sialoliths of the salivary gland occur commonly in adults, but are rare in children. Bilateral sialolithiasis of the salivary glands in children is very rare. We report a 14-year-old patient with bilateral sialoliths in the submandibular ducts. An X-ray film revealed one calcified body near the orifice on the right side and two calcified bodies on the left side, one of which was located near the orifice of the duct and the other near the salivary gland. When the anterior sialolith on the left side was removed, the posterior sialolith moved to a position near the orifice of the salivary duct. Thus, the patient could receive the second operation on the left side without the risk of damaging the lingual nerve located close to the salivary duct deep in the oral floor.

Key words: bilateral sialolithiasis (両側唾石症), submandibular gland (顎下腺), childhood (小児)

緒 言

唾石症は唾液腺体内もしくは導管内に結石が形成される疾患で、唾液腺疾患のなかでもっとも頻度の高いものである¹⁾。顎下腺に好発し、片側性に発症することが多い²⁾。年齢的には 20～40 歳代に好発し、小児では比較的まれな疾患とされている^{3～5)}。両側性に顎下腺導管唾石を認めた症例はさらに少なく、国内での報告は数例である⁶⁾。今回、われわれは 14 歳男児で両側性に顎下腺導管唾石を生じた症例を経験した。左側では、導管開口部ならびに腺体と導管の移行部で唾石を認め、導管開口部の唾石を除去することで、後方部唾石の前方への移動が認められた。若干の文献的考察を加え、その概要を報告する。

症 例

患 者: 14 歳, 男児。

初 診: 2013 年 9 月。

主 訴: 両側顎下部の腫脹と疼痛。

既往歴: 特記事項なし。

現病歴: 2013 年春、両側顎下部の腫脹を自覚し、近医耳鼻咽喉科を受診した。唾石症との診断のもと手術が行われたが摘出には至らず、経過観察となった。2013 年 9 月に再度、両側の顎下部に腫脹と疼痛が出現し、以前加療を受けた近医耳鼻咽喉科を受診した。抗菌薬を処方されたが、症状に変化はなく、5 日後に当院夜間救急外来を受診した。抗菌薬の経静脈投与を 2 日間受けたが、症状に改善がみられず、当科初診となった。

現 症:

全身所見: 体格中等度、栄養状態は良好であったが、疼痛のため食事摂取が十分ではなかった。

口腔外所見: 顔貌は左右対称で、食事時に両側顎下部に腫脹と疼痛を生じた。

口腔内所見: 両側の顎下腺導管開口部である舌下小丘部に発赤と腫脹を認めたが、耳鼻咽喉科にて受けた唾石摘出手術による切開創は明らかでなかった。両側ともに顎下腺

大阪大学大学院歯学研究科顎口腔病因病態制御学講座口腔外科学第二教室
(主任: 由良義明教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery II, Osaka University Graduate School of Dentistry (Chief: Prof. YURA Yoshiaki)

受付日: 2014 年 2 月 20 日

採択日: 2015 年 3 月 24 日

写真1 初診時口腔内写真

顎下腺導管の開口部付近の粘膜に発赤・腫脹を認める。唾液の流出は少なく、排膿も確認できない。

写真2 初診時咬合法X線写真

両側顎下腺導管の開口部付近にX線不透過像(矢頭)を認める。左側では腺体と導管の移行部にX線不透過像(矢頭)が確認できる。

の圧迫による導管開口部からの唾液の流出は減少しており、排膿は認められなかった(写真1)。

X線所見:咬合法X線写真にて両側導管開口部付近にそれぞれ1個のX線不透過像と左側では顎下腺体と導管の移

写真3 初診時単純CT写真

A: 右側顎下腺導管の開口部付近に径 5×3 mm大の石灰化物(矢頭), 左側顎下腺の導管開口部付近に径 7×4 mm大の石灰化物(矢頭)を認める。

B: 左側顎下腺から導管への移行部付近に直径2 mm大の石灰化物(矢頭)を認める。

行部に1個のX線不透過像を認めた(写真2)。CT検査でも右側導管開口部付近に径 5×3 mm大の石灰化物, 左側の導管開口部付近に径 7×4 mm大と腺体から導管の移行部付近に直径2 mm大の石灰化物を認めた(写真3A, B)。

臨床診断:両側性顎下腺唾石症。

処置および経過:初診当日、顎下腺の腫脹と疼痛を認めたため、口内法で導管部唾石を摘出する方針としたが、患児の同意が得られず、抗菌薬の経静脈投与および鎮痛薬の

写真4 左側顎下腺導管開口部付近の唾石摘出の7日後に撮影された咬合法X線写真

左側の腺体と導管の移行部に認めたX線不透過物が消失し、左側導管開口部に類円形のX線不透過像(矢頭)が認められる。

処方を行った。しかし、翌日の再診時に同意が得られたことから、局所麻酔下にて両側導管開口部の唾石摘出術を施行することとした。まず左側で顎下腺導管の走行を確認するため、導管開口部より涙管ブジーを挿入したが、開口部から後方へ進めることは困難であった。そこで、双手診で唾石を触知する口底粘膜に「2」から「4」相当部で顎下腺導管に沿って約10 mmの切開を加えた。唾石の位置を確認しながら粘膜下組織を鈍的に剥離して導管を明示し、唾石直上で近遠心的に導管を切開した。切開後の導管から唾石を摘出すると排膿ならびに唾液の流出が認められた。導管周囲に舌神経はみられなかった。後方の左側顎下腺導管唾石は小さく触知できなかった。口底の深部での手術操作で舌神経を損傷する可能性を配慮し、摘出は行わなかった。前方部の唾石を摘出したのち、術野を生理食塩水で洗浄し、切開した導管と口底粘膜の縫合は行わなかった。次に右側導管開口部付近の唾石も左側と同様にして摘出し、排膿と唾液の流出を認めた。術後7日に、左側に再度唾石痛が出現したため、咬合法X線写真を撮影したところ、初診時腺

写真5 摘出した唾石

A: 初回に摘出した唾石；右側は長径5 mm，左側は長径8 mmで淡黄色を呈している。

B: 2回目に摘出した唾石；長径2 mmで黄白色を呈している。

体と導管の移行部に存在していた2 mmの唾石が導管開口部付近に認められた(写真4)。唾石の前方移動を確認したのち唾石は触知できたので、その5日後に2回目の手術を行った。左側口底粘膜で前回の摘出術時の創部に再切開を加え、剥離を進めると前回の導管切開部で唾石を確認し摘出した。その後3か月経過観察を行ったが、顎下腺の腫脹や疼痛の再燃はなく経過良好であった。

摘出標本所見: 初回手術時に摘出した唾石は、右側は長径5 mm，左側は長径8 mmで淡黄色を呈した(写真5A)。2回目に摘出した左側の唾石は、長径2 mmで黄白色を呈した(写真5B)。

考 察

唾石症は日常的に遭遇する疾患である。なかでも顎下腺の唾石症は頻度の高い炎症性唾液腺疾患である。顎下腺以外の発症部位としては耳下腺が挙げられ、次いで上唇部の小唾液腺が続くとされている。顎下腺唾石症のうち、顎下腺とその導管内に発生する割合について、原ら³⁾は91.6%、左坐ら⁴⁾は98.7%、飯田ら⁵⁾は97.3%としている。そのうち、腺体唾石は、原ら³⁾で6.7%、左坐ら⁴⁾で9.5%、飯田ら⁵⁾で14.0%であり、顎下腺唾石症は、腺体よりも導管で多いと報告されている。また、両側性の顎下腺唾石の報告は少なく、原ら³⁾は273例中1例、左坐ら⁴⁾は276例中3例、飯田ら⁵⁾は150例中3例で両側性の症例を認めたとしている。顎下腺唾石症の好発年齢は20歳代から40歳代で、これらの年齢での発症は、原ら³⁾は71.4%、左坐ら⁴⁾は75.2%、飯田ら⁵⁾は58.9%と報告している。これに対して、若年者での発生頻度は低く、10歳から19歳までの年齢では、原ら³⁾は7.7%、左坐ら⁴⁾は10.5%、飯田ら⁵⁾は9.6%としている。小児で唾石症が少ない理由として、唾液の流出速度が速いこと、唾液腺開口部がきわめて小さいため、唾石形成の一因とされる異物が侵入しにくいことであり、たとえ形成されても自然排出される可能性があること、唾液中のカルシウムイオン、リンイオン濃度は低く結石を形成しにくいことなどが挙げられている⁶⁻⁸⁾。本症例は14歳の男児で、しかも両側性に顎下腺導管に計3個の唾石を認めており、きわめてまれな症例といえる。本症例において唾石ができた要因を特定することはできないが、2013年春に両側顎下部の腫脹を自覚し、近医耳鼻咽喉科を受診した病歴を有していた。唾液腺の炎症が唾石の形成と関連することが知られており⁸⁾、炎症による唾液の停滞が唾石症を発生する契機となった可能性がある。

顎下腺唾石症の治療法は唾石の位置により異なる。腺体唾石の場合は、口外法による顎下腺摘出術が適応となる。一方、顎下腺の導管は腺実質から舌下小丘の開口部まで全長約5～6 cmで、その径は開口部を除き平均1.5 mm (0.9～2.2 mm) であり^{9,10)}、導管内に生じた小唾石の場合、自然に排出されることもある。原ら³⁾は唾石の自然排出率が9.1%であったとしている。小児期では、唾液の速い流出、唾石の低い成熟度、周囲組織の柔軟性が、自然排出に貢献すると考えられる⁸⁾。

一方で、導管唾石の自然排出が認められず、口腔外から顎下腺とともに摘出した小児例も報告されている。石ら¹¹⁾は、腺体と導管の移行部に形成された唾石を約1か月間観察し、自然排出がみられないため全身麻酔下に口内法で摘出を試みている。しかしながら、唾石は確認できず、最終的に口外法で顎下腺とともに唾石を摘出したとしている。

また、口内法で移行部唾石を摘出する場合には、舌神経の損傷が重要な合併症として挙げられている。成人を含めた検討で、口内法で舌神経損傷をきたした割合について、Zenkら¹²⁾は1%以下、浜口ら¹³⁾は0%と報告している。長谷部ら¹⁴⁾が幼小児の唾石症に対して行った臨床統計では、口内法で舌神経が損傷した例については言及されていない。ただ、岩崎ら⁷⁾は3か月間の経過観察を行っても唾石が移動しないため口内法で唾石を摘出した小児例で、舌神経領域の感覚低下を術後の一定期間認めたとしている。

本症例では顎下腺導管開口部付近で左右それぞれ1個の唾石がみられ、左側では腺体と導管の移行部にも唾石が存在していた。初診の時点では口底に炎症所見があり、まず導管開口部付近に存在する唾石を摘出し、唾液の自然排出を促し、左側移行部唾石の排出を期待した。導管開口部の唾石を摘出すると排膿を認め、唾液の流出もみられるようになった。初診時のX線写真で左側導管開口部の唾石は長径が7 mmで後方唾石は長径が2 mmと小さかった。そして、前方部唾石摘出の1週間後にX線検査を行うと左側後方の唾石はなく導管開口部付近で新たに石灰化物が認められた。これは、前方の唾石が摘出されたことで、唾液の排泄路が確保され、小児に特有の速い唾液流出が回復し、唾液の排出圧力が加わることによって後方唾石が前方へ移動したためと考えられた。移動した唾石に対しては、唾仙痛を認めており、触知可能であったため5日後に処置を予定した。その間に自然排出は認めなかった。今後、増大して再度症状をきたす可能性もあるため、前回の摘出術創部を再切開して唾石の摘出を行った。

小児の唾石症に対する治療法の選択では、自然排出しないまでも、3か月から6か月程度観察して唾石の移動の有無を確認することが必要であり、その後に唾石の大きさ、部位、年齢、唾仙痛の有無等を配慮して、適切な治療を行うことが肝要である。口内法で移行部唾石を摘出する場合、舌神経に影響を与える可能性は否定できない。導管唾石が複数個存在する場合、前方のみを摘出して後方唾石の移動を待つことも小児の導管内唾石の治療では選択肢として念頭に置くべきと考える。

結 語

今回、14歳男児に生じた両側顎下腺管唾石症の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告した。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引 用 文 献

- 1) 白砂兼光, 古郷幹彦: 口腔外科学. 第3版, 医歯薬出版, 東京, 2010, 384-387頁.

- 2) 内田啓一, 黒岩博子, 他: 両側顎下腺唾石症の 1 例. 松本歯学 26: 151-152, 2000.
- 3) 原 利通, 福田健二, 他: 唾石症の臨床統計的および病理組織学的意義. 日口外誌 25: 1066-1072, 1979.
- 4) 左坐春喜, 篠原正徳, 他: 唾石症の臨床統計的検索. 日口外誌 29: 1304-1309, 1983.
- 5) 飯田征二, 古郷幹彦, 他: 顎下腺唾石の発生部位と臨床症状. 日口外誌 41: 890-892, 1995.
- 6) 小畑協一, 竜門幸司, 他: 6 歳男児に認められた両側性顎下腺管唾石症の 1 例. 津山中央医誌 27: 161-165, 2013.
- 7) 岩崎昭憲, 岡本雅之, 他: 12 歳女児に生じた両側顎下腺唾石症の 1 例. 小児口外 18: 35-38, 2008.
- 8) 酒井博史, 鹿嶋光司, 他: 3 歳女児に認められた顎下腺唾石症の 1 例. 小児口外 22: 163-167, 2012.
- 9) Zenk J, Hosemann WG, et al: Diameters of the main excretory ducts of the adult human submandibular and parotid gland: a histologic study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 85: 576-580, 1998.
- 10) 岸本誠司: 耳鼻咽喉科診療プラクティス 8 耳鼻咽喉科・頭頸部外科のための臨床解剖. 第 1 版, 文光堂, 東京, 2002, 164-167 頁.
- 11) 石公一郎, 木戸幸恵, 他: 4 歳 4 ヶ月男児に認められた顎下腺唾石症の 1 例. 小児口外 10: 88-93, 2000.
- 12) Zenk J, Constantinidis J, et al: Transoral removal of submandibular stones. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 127: 432-436, 2001.
- 13) 浜口清海, 福島英行, 他: 顎下腺唾石手術の検討. 口咽科 17: 297-302, 2005.
- 14) 長谷部大地, 五島秀樹, 他: 幼小児唾石症の臨床統計的検討. 日口外誌 59: 103-107, 2013.