舌下腺の腫瘍を思わせた Sjögren 症候群の 1 例

長島 弘征・浅田 洸一・地 挽 雅 人

長 嶋 和 浩・石 橋 克 禮

A case of Sjögren's syndrome suspected to be a lingual gland neoplasma

Hiroyuki NAGASHIMA・Koichi ASADA・Masato JIBIKI

Kazuhiro NAGASHIMA・Katsunori ISHIBASHI

Abstract: In Sjögren's syndrome, swelling of the parotid glands or submandibular glands is often found but unilateral enlargement of the lingual glands is rare. A case of Sjögren's syndrome with swelling of right lingual gland is reported. The patient was a 57-year-old woman. She complained of swelling of the right lingual gland that was suspected to be a neoplasm. However, histological findings of the lesion suggested Sjögren's syndrome. Sialography, tear flow rate and laboratory findings supported the diagnosis of Sjögren's syndrome.

Key words: Sjögren's syndrome (Sjögren 症候群), lingual gland (舌下腺)

緒 言

Sjögren 症候群で耳下腺、顎下腺の腫脹を認めることが多いが、他の唾液腺の腫脹を認めることは少ないといわれる¹⁻³⁾。

今回片側舌下腺の腫大を主訴に来院し、唾液腺腫瘍を疑った Sjögren 症候群の 1 例を経験したので報告する。

症 例

患 者：57歳 女性。

初 診：1991年 2 月 日。

主 訴：右口底部の腫大。

既往歴：20年前膝関節リウマチと診断されたが症状の増悪は認めていない。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2年ほど前に右口底部の腫大に気づくも、増大傾向なく、疼痛などの症状もないため放置していた。1991年 2 月初旬、近歯科医にて歯科治療中、口底部の腫脹を指摘され、来院した。

現 症：体格中等度で、耳下腺、顎下腺の腫大は認め

写真 1 初診時口腔内写真

右口底部に硬結ある腫脹を認める。

ない。右口底部に、弾性硬、可動性、空豆大の舌下腺と癒着する腫瘍を認める(写真1)。同部は粘膜色で圧痛は認めない。両側の舌下小丘および耳下腺乳頭からの唾液の流出はやや少なく、若干の口腔乾燥感を認める。舌乳頭は萎縮、消失し、舌表面の平滑化が認められる。また目の灼熱感、掻痒感、乾燥感などの眼症状はない。

臨床診断：舌下腺腫瘍。

生検所見：局麻下に、右口底部腫瘍の生検を行った。Wharton 管に消息子を挿入後、右口底粘膜に舌下ひだに沿って切開を加え、その直下に分葉状の腫瘍を認めた。腫瘍は舌下腺そのもので、腺体前方の硬化性変化を認めた部分を一部切除し、同部を生検とした。

病理組織所見：腺組織内にはび漫性にリンパ性細胞の浸潤および腺房細胞の萎縮、消失が認められた。リンパ

鶴見大学歯学部第 2 口腔外科学教室
(主任：石橋克禮教授)

Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Tsurumi University, School of Dental Medicine (Chief: Prof. Katsunori Ishibashi)

受付日：平成 5 年 1 月 19 日

表 1 臨床検査所見

赤血球	358万/mm ³	TP	7.8 g/dl	抗核抗体	(+)
白血球	6,100/mm ³	A/G Ratio	1.0	抗 RNP 抗体	(-)
Hb	11.3 g/dl	T-Bi	0.5 mg/dl	抗 SS-A 抗体	(+)
Ht	36.8%	Al-p	6.9 K.A.U.	抗 SS-B 抗体	(-)
血小板	18.7万/mm ³	GOT	20 U.	RA	(+)
血沈	39 mm/hr	GPT	17 U.	CRP	(+)
血液像		Amylase	123 U.		
Baso	1	Cho-E	1.05Δ pH		
Eosino	1	Urea-N	20.3 mg/dl		
N	82	Na	145 mEq/l		
Ly	13	K	4.1 mEq/l		
Mono	3	Cl	109 mEq/l

写真 2 病理組織写真 (×80)

小葉内導管周囲のリンパ性細胞浸潤と筋上皮島の形成。

性細胞の浸潤は特に小葉内導管周囲に著明に認められ、リンパ性細胞浸潤の強い部位にはリンパ球の形成もみられた。また導管上皮は増殖し、管腔の狭窄や拡張をきたし、いわゆる筋上皮島も多く認められた(写真2)。以上の病理組織所見から Sjögren 症候群が疑われ、他の検査を行った。

X線造影所見：水溶性造影剤 (76%ウログラフィン) による耳下腺造影にて、主導管 (Stensen 管) には大きな変化はみられないが、腺体内導管が不明瞭で、実質系では直径 1~2 mm 程度の大小不同の点状・斑状陰影像が認められた(写真3)。

涙腺機能所見：Schirmer 試験を通法に従い行い、5 分後の測定結果は右側 5 mm、左側 8 mm で両眼とも 10 mm 以下で陽性だった。

臨床検査所見：一般血液検査では、やや貧血性の所見と、血沈の中程度亢進がみられ、血液像ではリンパ球の減少がみられた。血液生化学検査では、A/G 比の逆転、また免疫学検査では、抗核抗体(+), 抗 SS-A 抗体(+), RA (+), CRP (+) であった(表1)。

確定診断ならびに経過：以上の組織所見と検査結果から Sjögren 症候群と診断し、唾液腺ホルモンの内服、人

写真 3 X線造影写真

耳下腺に直径 1~2 mm 程度の大小不同の点状・斑状陰影像が認められる。

工唾液の使用により、口腔乾燥の症状の改善傾向を認め、右口底腫瘍の再発なく現在経過観察中である。

考 察

Sjögren 症候群における唾液腺の腫脹についてみてみると、東条ら⁴⁾は耳下腺47.5%、顎下腺17.9%、また大藤ら⁵⁾は耳下腺41.6%、顎下腺16.2%に認められるとしている。他の唾液腺では、われわれの渉猟しえた限りでは口蓋腺腫大の報告⁶⁾はあるが、舌下腺の腫脹を認めた例の報告はなく、まれであると考えられる。

本例は片側舌下腺の腫大、硬結を認め、炎症症状を欠くことにより、初診時唾液腺由来の腫瘍を疑ったが、舌下腺生検所見、耳下腺造影像、Schirmer 試験所見、抗核抗体(+), 抗 SS-A 抗体(+), の所見からいわゆる厚生省の Sjögren 症候群の診断基準²⁾を満たすものと考えられる。

Sjögren 症候群は外分泌系が系統的に侵される疾患であり、石川・小守ら⁷⁾は耳下腺が最も侵されやすいが、いずれの唾液腺においてもリンパ性細胞の浸潤を主とした組織変化が認められるとし、口唇腺生検の診断的価値を論じ、口唇腺の組織変化の程度を5段階に分類している。それに従えば本例は高度な変化をみるものに属する。臨床的に生検部位として口唇腺が用いられることが多いが^{3,8)}、市川ら⁹⁾は Sjögren 症候群の診断に舌下腺生検を行っており、単核球浸潤を指標として5段階に分類している。それに従えば本例の組織学的グレードは最も高度に属する。

Sjögren 症候群の組織学的検索で各唾液腺間で病変の進行度が一致するか問題となるところであるが⁸⁻¹⁰⁾、各小葉間でも腺房の萎縮の程度、単核細胞浸潤の程度に差がみられることから、小唾液腺と大唾液腺間や大唾液腺間の病変の進行に多少の差がみられても不思議ではない。それが病変の進行度の判定にあたり、口唇腺生検所見と耳下腺造影所見や口腔乾燥症状が必ずしも一致しない理由かと思われる。

本症例において口腔乾燥症状がさほど強くなく、Rubin & Holt の分類¹¹⁾に準じた耳下腺造影所見は Stage II に相当する変化に対して、舌下腺組織所見では小葉内腺組織の消失、単核細胞浸潤、筋上皮島様構造の形成などの高度な変化を認めた。これは耳下腺や涙腺にみられる病変の程度に比べ、右舌下腺に高度な組織変化が起きているといえる。いいかえると、唾影像や Schirmer 試験で認められる耳下腺や涙腺の破壊に加えて、右舌下腺は限局性の高度なリンパ性細胞浸潤が生じたため、臨床的に腫瘍を疑わせる腫大、硬結を認めたものと思われる。

Sjögren 症候群において、リンパ性細胞浸潤により一般に両側性の耳下腺または顎下腺の腫大をきたすと思われる。まれではあるが片側性の口蓋腺や舌下腺にこのような現象を強く生じると、臨床的に新生物との鑑別を要する症例となる可能性もあり、Sjögren 症候群の診断にあたってはこの点の留意も必要と考えられる。

結 語

片側舌下腺の腫大を主訴に来院し、腫大部舌下腺の病理組織所見、耳下腺造影像、涙腺分泌試験所見、臨床検査所見から Sjögren 症候群と診断した1例を経験したので報告した。

本文の要旨は第25回日本口腔科学会関東地方会にて発表した。

引 用 文 献

- 1) 市川幸延, 高屋正敏, 他: Sjögren 症候群 117 例の臨床的検討. リウマチ 21(2):91-102 1981.
- 2) 宮脇昌二, 大藤 眞: Sjögren 症候群. 日本臨床 44: 1604-1613 1986.
- 3) 石川梧朗監修: 口腔病理学Ⅱ. 改訂版, 永末書店, 京都, 1982, 444-450頁.
- 4) 東条 毅, 大藤 眞, 他: シェーグレン病の疫学調査, 厚生省特定疾患シェーグレン病調査研究班. 昭和53年度研究業績: 45-60 1978.
- 5) 大藤 眞, 宮脇昌二: Mikulicz 病から Sjögren 症候群まで. 免疫と疾患 6(3): 351-355 1983.
- 6) 中村シズエ, 空閑祥浩, 他: 口蓋部腫瘤により発見された Sjögren 症候群の1例(抄). 日口外誌 30: 1463 1984.
- 7) 石川梧朗, 小守 昭, 他: Sjögren 症候群における口唇腺生検の診断的価値. 口科誌 28: 1-8 1979.
- 8) 篠原正徳, 左坐春善, 他: Sjögren 症候群の臨床的・病理組織学的検索. 日口外誌 35: 196-208 1989.
- 9) 市川幸延, 郡山健治, 他: Sjögren 症候群—唾液腺組織像と唾液腺造影所見の相関を中心として—. アレルギー 25: 441-446 1976.
- 10) 唐橋 宥: Sjögren 症候群の臨床的研究. 第二報 唾影像と病理組織所見との比較検討. 歯科学報 80: 465-471 1980.
- 11) Rubin, P. and Holt, J.F.: Secretory sialography in diseases of the major salivary gland. Am J Roentol 77: 575-598 1957.