小唾液腺唾石に合併した放線菌症の1例

篠崎 泰久・星 健太郎
神部 芳則・草間 幹夫A case of sialolithiasis with actinomycosis in the
minor salivary glandsSHINOZAKI Yasuhisa・HOSHI Kentaro
JINBU Yoshinori・KUSAMA Mikio

Abstract: A 77-year-old man presented with a painless swelling in the right side of the buccal mucosa. A tumor of the buccal mucosa was suspected on the basis of clinical and radiological findings. However, histopathological examination of a biopsy specimen showed a sialolith accompanied by adhesion of Actinomyces, suggesting that the lesion was caused by minor salivary gland sialolithiasis and actinomycosis. As this condition has not been reported previously, the present case must be extremely rare.

Key words: minor salivary gland (小唾液腺), sialolithiasis (唾石症), actinomycosis (放線菌症)

緒 言

唾石症は臨床的においてしばしば遭遇する疾患の1つであるが、その多くは顎下腺に発生し、小唾液腺に発生することは少ない。一方、放線菌症は多発性膿瘍、板状硬結、開口障害を主症状とする慢性特異性炎であるが、近年典型的な臨床症状を示す症例は減少してきている¹⁾。今回われわれは、上唇に発生した小唾液腺唾石症に放線菌症を合併したきわめてまれな症例を経験したので、若干の考察を加えて報告する。

症 例

患 者：77歳、男性。

初 診：2002年11月■日。

主 訴：右側上唇の無痛性の腫瘍。

既往歴：肺気腫と前立腺肥大症のため、近病院にて加療中であった。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：初診1週間前より右側上唇の無痛性腫瘍を自覚し近歯科受診し、抗菌薬の投与を受けたが、改善が認められないため当科紹介来院となる。

現 症：

全身所見：体格中等度、栄養状態良好。

顔貌所見：右側上唇に境界明瞭な可動性、拇指頭大の半球状の腫瘍を認めたが、自発痛および圧痛は認めなかった(写真1)。

口腔内所見：粘膜は正常で腫瘍を触知した。硬さは弾性硬で可動性であった(写真2)。

MRI 所見：右側上唇に直径約1cmの腫瘍性病変を認めた。T1強調像で低信号を示し、T2強調像で高信号を示したが、中心部では一部低信号の領域を認めた(写真3A, B)。

臨床診断：上唇腫瘍疑い。

処置および経過：2002年12月■日上唇粘膜の腫瘍直上に切開を加え、病変の一部を切除し生検を行った。その結果、病理組織学的に放線菌の付着を伴った唾石とその周囲に著明な炎症細胞浸潤を認めた。

確定診断後、AMPC (Sawacillin®) 750mgを2週間内服を行い経過観察を行ったところ、腫瘍は著明に縮小した。3か月経過後に小腫瘍の残存を認めたため、2003年3月■日局所麻酔下に、腫瘍直上の粘膜に切開を加え、周囲の組織を含めて切除した。現在、再発もなく経過良好である。

病理組織学的所見：

生検標本：拡張した導管内に軽度石灰化した層状構造を示す唾石が観察され、その中心部には細菌塊を認めた。またその周囲には拡張した導管と導管周囲には線維化の進

自治医科大学歯科口腔外科学講座
(主任：草間幹夫教授)

Department of Dentistry, Oral and Maxillofacial Surgery, Jichi
Medical School (Chief: Prof. KUSAMA Mikio)

受付日：2003年12月22日

採択日：2004年7月27日

写真1 顔貌写真
右側口唇に境界明瞭な半球状の腫瘍を認めた。

写真4 生検標本の病理組織像
拡張した導管内に層状構造を示す唾石を認め (A), 一部では中心部に細菌塊を認めた (B). (H-E 染色, $\times 40$)

写真2 口腔内写真
粘膜は正常で粘膜下に腫瘍を触知した。

写真5 生検標本の病理組織像
唾石の周囲に棍棒状構造を示す菌塊を認めた (H-E 染色, $\times 200$).

写真3 MR像
A: T1 強調像で病変部は低信号を示した。
B: T2 強調像で病変部は高信号を示したが中心部では一部低信号の領域を認めた。

行と著明な炎症細胞浸潤を認めた (写真4)。強拡大では唾石周囲には多数の細菌集落が付着し、その集落の一部に菌塊が認められ、放射状に配列するエオジン好性の棍棒状構造、菌塊周囲には好中球浸潤を認めた (写真5)。

摘出標本; 少量の好中球, リンパ球形質細胞浸潤を認めたが、放線菌や唾石の存在は認めなかった。

考 察

唾石症は唾液腺の導管や腺体内に結石を生じる疾患で、おもに大唾液腺の唾石症の90%が顎下腺に発症すると報告されている^{2, 3)}。小唾液腺の唾石症の頻度は全唾石症の0.4~3.7%^{2, 4)}と報告されており、比較的まれな疾患と考えられている。

小唾液腺の唾石症の好発部位は上唇、頬粘膜、下唇、舌尖の順に多く⁵⁾、性差は男性 1.6 に対し女性 1 と男性に多く⁶⁾、好発年齢は楯谷ら⁷⁾が平均 40.9 歳で 20 歳から 40 歳台に多いと報告している。唾石の発生原因については、唾液の化学的性状の変化、唾液の停滞、局所の炎症、口腔細菌の関与などが考えられている⁸⁾。特に口唇や頬粘膜は菌や義歯などの刺激を受けやすいことから外傷性の要因が重要視されているが、本症例の場合は唾石の中心部に細菌塊が病理組織学的に観察されたことから、口腔細菌を核とした石灰化の可能性が強く示唆された。また唾石には明確な層状構造を認めたことから、唾石の形成に比較的長い時間を要した可能性が考えられた。

臨床症状については小唾液腺の唾石症は、大唾液腺唾石症にみられるような唾疳痛などの典型的な症状に乏しく、また、大唾液腺の唾石症と比較して、硬組織の触知や画像での描写はされにくいと報告されている^{9, 10)}。本症例の場合臨床的には弾性硬の腫瘤を認めた。MRI 画像の T2 強調画像で中心部に低信号の領域を認め、線維化や出血の他、石灰化も考えられたが、全体像から腫瘍を最も疑った。

本症例の病理組織所見において、唾石に放線菌の付着を認めたこと、またその周囲組織には著明な炎症細胞浸潤を認めたことから放線菌症を合併したものと考えられた。すなわち、臨床的に認めた腫瘤は放線菌によって惹起された炎症反応と判断し、本症例は唾石症に合併した放線菌症と診断した。顎放線菌症は従来、多発性膿瘍、板状硬結、開口障害を特徴とする特異性炎と考えられている。しかし近年、典型的な症状を示す症例は減少し、臨床診断が困難な疾患となりつつある。口腔領域の放線菌症の頻度について新藤¹¹⁾は病型別に分類し顎炎が 76.3 % と最も多く顎骨骨髓炎 10.5 %、顎下リンパ節炎 7.9 %、歯根嚢胞 2.6 %、小唾液腺炎 1.3 %、頸部膿瘍 1.3 % の順に多いと述べている。感染経路は菌性感染が 60.3 % と最も多く、今回のような唾石症

に合併した報告はみられなかった。

このように本症例は何らかの原因で頬粘膜の小唾液腺に口腔細菌が感染し、この細菌を核に唾石が生じ、さらにその表面に放線菌が付着し放線菌症を発症したとわめてまれな症例と考えられた。

結 語

今回われわれは、小唾液腺に生じた唾石症に放線菌症を合併したまれな 1 例を経験し、若干の考察を加えて報告した。

引 用 文 献

- 1) 新藤潤一：口腔領域における放線菌の現況全国 45 施設・140 症例の分析。日口外誌 29: 1879-1889 1983.
- 2) 武田祥子, 川口哲司, 他：唾石症に関する臨床的研究。日口外誌 40: 155-160 1994.
- 3) 梅岡比俊, 家根旦有, 他：顎下腺唾石症の臨床統計。耳鼻臨床 95: 1143-1146 2002.
- 4) 小林吉史, 寺崎伸一郎, 他：小唾液腺唾石症の臨床病理学的検討。日口外誌 36: 2622-2627 1990.
- 5) 山村崇之, 安藤智博, 他：下唇に生じた小唾液腺唾石症の 1 例。日口診誌 15: 150-152 2002.
- 6) 赤坂庸子, 青柳 治, 他：当科における唾石症の臨床統計的検討。栃歯誌 50: 49-54 1998.
- 7) 楯谷智子, 北村溥之, 他：顎下腺唾石症の検討。耳鼻臨床 93: 833-837 2000.
- 8) 安達吉嗣, 鹿島秀男, 他：唾石の形成に菌体内石灰化の関与が考えられた一例。神奈川リハセンター紀要 25: 45-47.
- 9) 高木純一郎, 宮田 勝, 他：頬粘膜に生じた小唾液腺唾石症の 1 例。石川県中医誌 23: 137-138 2001.
- 10) 林 秀一, 森田章介, 他：小唾液腺唾石症の 2 症例。日口外誌 41: 169-171 1995.
- 11) 新藤潤一：口腔領域における放線菌症（上）。歯界展望 60: 833-844 1982.