上唇および両側頬粘膜に多発した小唾液腺唾石症の1例

池田 薫・神部芳則・青木実紀
宮城徳人*・草間幹夫*・三田村治郎**

A case of multiple sialoliths occurring in the minor salivary glands of the upper lip and bilaterally in the buccal mucosa

IKEDA Kaoru · JINBU Yoshinori · AOKI Miki
MIYAGI Norito * · KUSAMA Mikio * · MITAMURA Jiro **

Abstract: Sialolithiasis of the minor salivary glands is a rare disease. We report an extremely rare case of multiple sialoliths occurring in the minor salivary glands of the upper lip and arising bilaterally in the buccal mucosa. A 86-year-old man presented with multiple small nodules arising in the upper lip and occurring bilaterally in the buccal mucosa. He noticed these nodules about 10 years previously. He felt no pain. Multiple small nodules just beneath the normal mucosa were detected on palpation, suggesting multiple calcifications under the oral mucosa. Histopathologically, these lesions were diagnosed as sialolithiasis with chronic inflammation of the minor salivary glands.

Key words: minor salivary gland (小唾液腺), sialolithiasis (唾石症), multiple (多発性), upper lip (上唇), buccal mucosa (頬粘膜)

緒 言

唾石症は日常の臨床でしばしば経験する疾患の1つであり、多くは顎下腺に生じ、小唾液腺に生じることは比較的まれである¹⁾。今回われわれは上唇粘膜から両側頬粘膜の粘膜下に多数の小石灰化物を触知し、生検の結果、小唾液腺唾石と診断されたきわめてまれな症例を経験したので報告する。

症 例

患 者：86歳、男性。

自治医科大学附属大宮医療センター総合医学第2講座
科口腔外科

(主任：井野隆史教授)

*自治医科大学歯科口腔外科学講座

(主任：草間幹夫教授)

**国際医療福祉大学クリニック歯科口腔外科

(主任：大橋一之助教授)

Department of Dentistry, Oral and Maxillofacial Surgery,
Omiya Medical Center, Jichi Medical School (Chief: Prof.
INO Takashi)

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

**Department of Dentistry and Oral Surgery, International
University of Health and Welfare Clinic (Chief: Associate
Prof. OHASHI Kazuyuki)

受付日：2004年12月8日

採択日：2005年7月26日

初 診：2004年9月

主 訴：上唇および両側頬粘膜下の小腫瘍。

現病歴：約10年前に上唇粘膜下に凹凸不整の小腫瘍が多数あるのを自覚した。疼痛や腫脹がなく、放置していたが、最近になり小腫瘍が増大してきたため近くの内科を受診し、当科を紹介され来院した。

既往歴：10年前に大腸癌のため某総合病院で手術を受け、経過観察中である。また、6年前に他の病院で硬膜下血腫、高血圧、不整脈と診断され、硬膜下血腫については手術が行われ、その後、抗凝固療法中である。

現 症：

全身所見：身長160cm、体重63kg、特に異常はなかった。

顔貌所見：顔貌は左右対称で、口唇や頬部に異常はなかった。

口腔内所見：上唇粘膜および両側頬粘膜には発赤や腫脹などの炎症症状や腫瘍はみられなかった(写真1)。しかし、触診では上唇から両側頬粘膜直下に多数の小腫瘍を触知した。小腫瘍は左右それぞれ10～12個あり、圧痛は認めなかった。舌およびその他の口腔粘膜に異常はみられず、小腫瘍も触知しなかった。

X線所見：パノラマX線写真、上顎咬合法、さらに上唇粘膜側に挿入し、撮影したデンタルX線写真で小腫瘍はX線不透過像としては観察されなかった。

写真1 口腔内写真

口腔粘膜は正常であり、粘膜下に多数の小腫瘤を触知した（上段：右側頬粘膜，下段：左側頬粘膜）。

血液検査：血液一般，生化学検査で総ビリルビン，GOT，GPT がやや高値を示した以外，異常値はなかった。

臨床診断：上唇および頬粘膜多発性小唾液腺唾石症あるいは異所性石灰化。

処置および経過：上記臨床診断で生検を施行した。右側頬粘膜の小腫瘤直上に切開を加えると，上皮下に直径1～2 mm 大の黄褐色の石灰化物を2個認め，その深部にさらに3個の石灰化物を認めたため摘出した（写真2）。石灰化物周囲に軟組織の付着はほとんどなく容易に摘出可能であった。また，切開部よりもやや前方の口角付近に小腫瘤を1個触知し，石灰化物と周囲組織の病態を確認するため粘膜上皮をレンズ状に切開し，周囲組織とともに小腫瘤を切除した。病理組織学的診断は慢性炎症を伴う唾石であった。患者に病名を説明したところ，悪性の疾患でなければこのままで様子をみたいとの希望があったため，他の唾石を摘出することなく，現在，経過観察を行っている。

病理組織学的所見：類円形あるいは楕円形の小石灰化物を認め，その内部が層状構造の明らかなものと，ほぼ均一

写真2 生検時の口腔内写真

右側頬粘膜の小腫瘤直上に切開を加えると，直径1～2 mm の黄褐色の石灰化物を認めた。

写真3 生検標本の病理組織像

層状構造の明らかな唾石（A）とほぼ均一で内部が無構造の唾石（B）を認めた。周囲には導管の拡大と慢性炎症細胞浸潤を認めた。

で無構造のものがあつた，石灰化物の周囲には導管の拡大を伴った小唾液腺とリンパ球を主体とした慢性炎症細胞浸潤や肉芽組織ないし線維性結合組織の増生を認めた（写真3）。

考 察

小唾液腺における唾石の発生は複数の唾液腺に多発性に発生したものはきわめてまれであり、武田ら²⁾は唾石症255例中1例(0.4%)、飯田ら³⁾は150例中2例(1.3%)と報告している。発生年齢についてはGöranら⁴⁾は平均54.5歳、Hurlenら⁵⁾は平均56歳、Jensenら⁶⁾は平均58.4歳と報告しており、小唾液腺における唾石の発生は中高年に多い傾向がある。また性別ではGöranら⁴⁾、Pullonら⁷⁾、大山ら⁸⁾のいずれの報告でも男性に多い。発生部位は上唇と頬粘膜が多く、Göranら⁴⁾の報告では49例中上唇が23例(46.9%)、頬粘膜が15例(30.1%)である。Jensenら⁶⁾の報告では47例中上唇が37例(48.7%)、頬粘膜が19例(40.4%)、またYamaneら⁹⁾によると76例中上唇37例(48.7%)、頬粘膜26例(34%)であった。小唾液腺唾石症の臨床症状については無痛性の腫脹あるいは腫瘍が多く、大唾液腺の唾石でみられる唾仙痛はなかったと報告されている⁸⁾。また、一般に唾石が非常に小さいことから触診でも触知が不可能なことも多く、本症例のようにX線写真でもX線不透過像として観察できなかった症例がほとんどであり、そのため、良性腫瘍あるいは粘液嚢胞と臨床診断されたものが多かった^{10, 11)}。

一般に小唾液腺唾石症は、一か所に限局した病変であり、唾石の数は多くの場合は1個である¹²⁾。最近われわれは多数の唾石を認めた小唾液腺唾石症の2例を報告したが¹³⁾、2例とも1つの腫瘍状の病変内に複数の唾石を認める比較的多発な症例であった。これに対し、小唾液腺唾石が異なる部位に多発することはきわめてまれであり、海外での報告例はなく、本邦では上・下唇に多発した相原ら¹⁴⁾の報告のみである。相原ら¹⁴⁾によると患者は85歳の男性で上唇の痛性の腫脹を主訴に受診し、触診により、右側上唇、左側上唇、右側下唇にそれぞれ1個の硬固物を触知し、左側下唇には数個の硬固物を触知し、小唾液腺唾石症と診断された。しかしながら、自然排出された左側上唇の1個について組成分析を行ったのみで病理組織学的な検討は行われていない。本症例を相原ら¹⁴⁾の症例と比較すると、年齢、性は一致しているものの、圧痛や排膿などの急性炎症症状は伴っていなかったこと、部位が左右に離れておらず、上唇から両側頬粘膜に連続していたことなど臨床症状が異なっていた。

Annerothら¹⁵⁾は唾石の病理組織像について、経過の長いものでは中央部の均質無構造な部位を取り囲むように層状構造を認めることが多く、経過の短いものでは全体的に均質無構造な所見を示すことを報告している。本症例の場合、病理組織学的に層状構造の明らかなものと、ほぼ均一で無構造のもの2種類が混在していた。患者はすでに10年前から小腫瘍を自覚しており非常に経過が長く、層状構

造を有している唾石は、かなり前に形成されたと考えられた。一方、最近になり小腫瘍の増加を訴えており、これは唾石が最近新たに形成されたことを示唆している。本症例では外層は層状構造で中心は均一な唾石はこのような最近新たに形成されたものと考えられた。小唾液腺唾石の発生機序については、導管内に停滞貯留した唾液が2次的に石灰化を生じるためと考えられており、直接の原因として外傷や細菌感染、唾液の生化学的性状の変化や分泌量の変化などがあげられる¹¹⁾。石灰化の核として唾石の中心部に細菌塊を認めることがあるが、本症例では明らかでなかった。また、既往歴として上唇、頬粘膜の外傷や炎症などが無いこと、唾石が広範囲に多発していることから高齢化を含めた何らかの誘因による小唾液腺における唾液の分泌機能の低下や唾液の生化学的性状の変化が原因と考えられた。

引用文献

- 1) 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.
- 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) 飯田征二, 白砂兼光, 他: 口唇小唾液腺唾石症の3例. 日口外誌 41: 263-265 1994.
- 4) Göran, A. and Louis, S.H.: Minor salivary gland calculi. Int J Oral Surg 12: 80-89 1983.
- 5) Hurlen, B. and Koppang, H.S.: Multiple sialolithiasis of minor salivary glands: report of a case. Brit J Oral Surg 10: 193-198 1972.
- 6) Jensen, J.L., Howell, F.V. et al.: Minor salivary glands calculi. Oral Surg 47: 44-50 1979.
- 7) Pullon, P.A. and Miller, A.S.: Sialolithiasis of accessory salivary glands: Review of 55 cases. J Oral Surg 30: 832-834 1972.
- 8) 大山順子, 竹之下康治, 他: 上唇小唾液腺に生じた唾石症の2例—文献的考察を加えて—. 日口外誌 37: 161-167 1991.
- 9) Yamane, G., Scharlock, S.E. et al.: Intra-oral minor salivary gland sialolithiasis. J Oral Med 39: 85-90 1984.
- 10) 鈴木 円, 宮田 勝, 他: 小児の頬粘膜に生じた小唾液腺唾石症の1例. 児口外 12: 12-14 2002.
- 11) 坂下英明, 宮田 勝, 他: 上唇に発生した小唾液腺唾石症の1例. 日口外誌 39: 932-933 1993.
- 12) 阿部廣幸, 関口英行, 他: 小唾液腺唾石症の3例. 口科誌 34: 727-735 1985.
- 13) 大多和 薫, 神部芳則, 他: 多数の唾石を認めた口唇小唾液腺唾石症の2例. 日口診誌 17: 254-257 2004.
- 14) 相原悦二郎, 龍田恒康, 他: 異なる小唾液腺に多発した唾石症の1例—その唾石の組成分析—. 日口診誌 15: 330-333 2002.
- 15) Anneroth, G. and Hansen, L.S.: Minor salivary gland calculi. A clinical and histopathological study of 49 cases. J Oral Surg 12: 80-89 1983.