

上下唇および両側頬粘膜に多発した 小唾液腺唾石症の1例

浜川 知大^{***} 岩本 和樹^{*} 兵頭 正秀
寺門 永顕

要 旨

唾石症は唾液腺の腺体または導管の中に石灰性結石を生じる疾患で、大唾液腺、特に顎下腺部に多く、小唾液腺に発生するのは比較的まれなものとされている。今回われわれは、上下唇粘膜から両側頬粘膜の粘膜下に多発する、石灰化物をともなう小腫瘍を認め、生検の結果小唾液腺唾石症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：78歳，男性。

初 診：2015年4月。

主 訴：上下唇および両側頬粘膜下の小腫瘍。

既往歴：糖尿病。

現病歴：2015年2月頃より両側頬粘膜に多発する粘膜下腫瘍を自覚するようになった。内服薬の副作用を疑いかかりつけ内科にて薬剤変更を行うも症状の変化を認めなかったため、同年3月に近在総合病院耳鼻咽喉科を受診した。同科で左側頬粘膜より生検を行ったところ、唾石症による慢性唾液腺炎の所見を認めた。その後経過観察を行っていたが、さらなる精査加療を希望して当科紹介となった。

〈現症〉

全身所見：体格は中等度，栄養状態は良好であった。

口腔外所見：顔貌は左右対称であった。

口腔内所見：上下唇粘膜から両側頬粘膜にかけて

多発する，弾性軟からやや硬で，可動性の乏しい小腫瘍を認めた (Fig. 1)。表面粘膜に異常所見はなく，癒着は認めなかった。一部の腫瘍からは圧迫にて少量の排膿を認めた。

臨床検査所見：血液一般および生化学的検査で異常を認めなかった。

画像所見：パノラマ X 線写真で小腫瘍の部位に X 線不透過像の観察は困難だが，下顎咬合法では両側臼歯部頬側の粘膜下に相当する部位に複数の X 線不透過像を認めた (Fig. 2)。単純 CT 検査においても両側下顎臼歯部頬側に少なくとも3個の小さな硬組織像を認めた (Fig. 3)。

臨床診断：上下唇および両側頬粘膜多発性小唾液腺唾石症



Fig. 1 初診時口腔内写真

両側下顎臼歯部相当部の頬粘膜下に，被覆粘膜は正常な隆起性小腫瘍を認める。

*松山赤十字病院 歯科口腔外科

**愛媛大学大学院医学系研究科 口腔顎顔面外科学分野

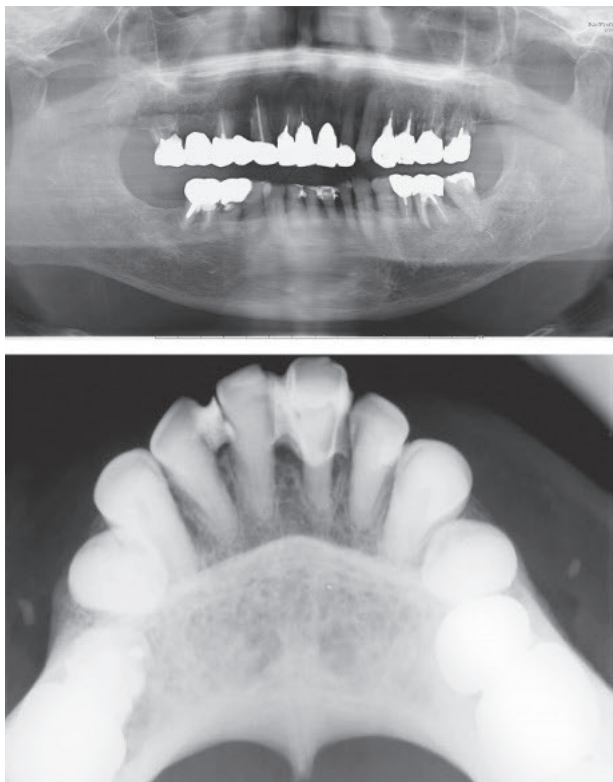


Fig. 2 初診時パノラマ X 線および咬合法 X 線写真
パノラマ X 線写真では石灰化物を指摘できないが、咬
合法 X 線写真では両側下顎小白歯部の頰側に石灰化物
を認める。

処置および経過：2015年4月中旬、局所麻酔下
に左下小白歯相当部頰粘膜の腫瘍摘出術を施行し
た。被覆粘膜を含めて切除し、腫瘍は類球形で充実
性であり、明瞭な被膜を有しなかった。周囲結合組
織との癒着は認めなかった (**Fig. 4**)。摘出した腫
瘍を切開すると、内部に黄褐色の石灰化物を複数個
認めた (**Fig. 5**)。術後の創部治癒は良好で、摘出
部に腫瘍の再発は認めなかったが、多発する腫瘍の
摘出を強く希望され、2015年5月、7月、9月に、
それぞれ、右上小白歯相当部、左上小白歯相当部、
右下小白歯相当部の頰粘膜の腫瘍摘出術を施行し
た。術後の経過は良好で、術後1年が経過した現在、
摘出部位に再発は認めず、小さな腫瘍については経
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、内部はほぼ均一で無構造だが、一部
で周囲を取り囲むように層状構造を認めた。石灰化
物の周囲には導管の拡張を伴う小唾液腺と、慢性細

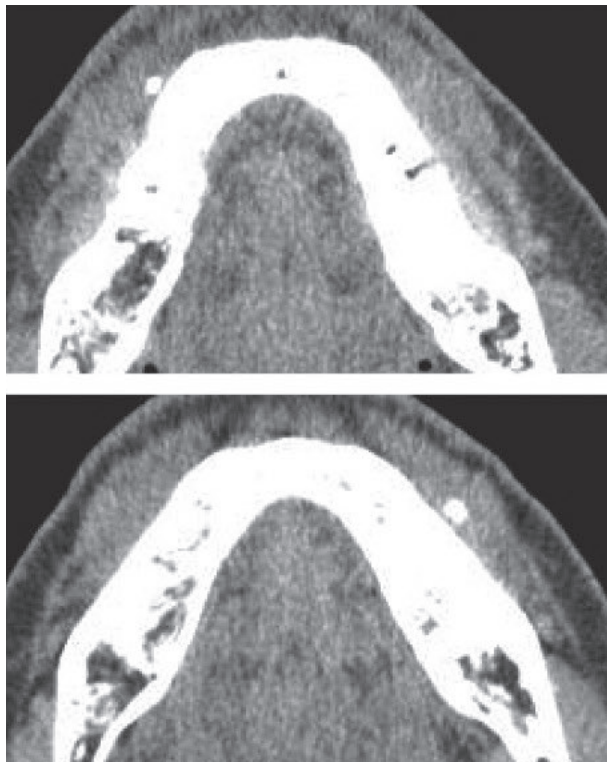


Fig. 3 CT 画像

両側頰粘膜下に下顎骨とは連続性のない小石灰化物を
認める。



Fig. 4 生検時口腔内写真

粘膜下に、明瞭な被膜を有しない、癥痕様で充実性の
軟組織を認めた。

胞浸潤や肉芽組織、線維性結合組織の増生を認めた
(**Fig. 6**)。

病理組織学的診断：小唾液腺唾石症

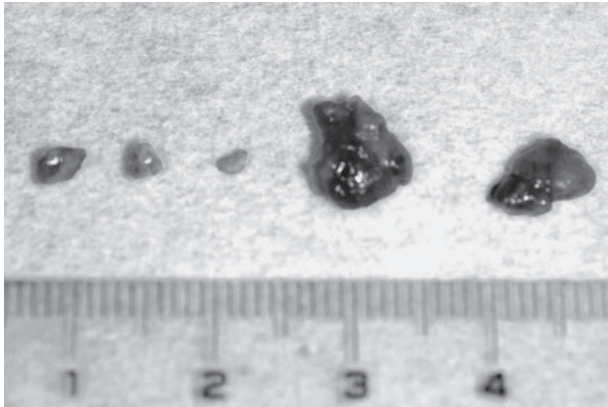


Fig. 5 摘出物写真

摘出した小腫瘍の内部より、2～4 mmの黄褐色の石灰化物を3つ認めた。

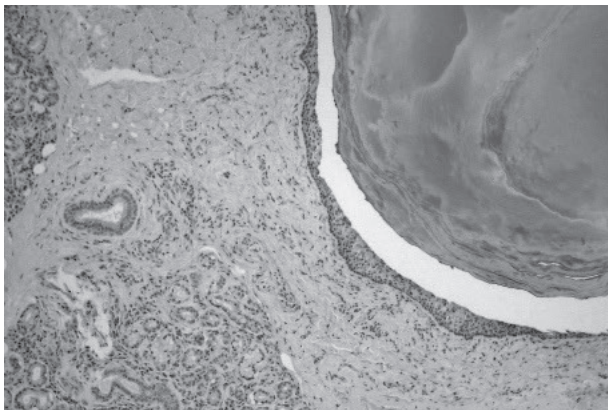


Fig. 6 病理組織像

拡張した導管の内部に、中央部は均質で無構造、外層は同心円状の層状構造を示す石灰化物を認めた。

考 察

唾石症の多くは大唾液腺、特に顎下腺に発生し、Rauchら¹⁾は顎下腺に92%、耳下腺に6%、舌下腺および小唾液腺は2%であったと報告している。本邦において、小唾液腺唾石症はすべての唾石症症例の0.3%～3.7%と報告されている^{2),3)}。発生年齢については平均54.5歳～58.4歳と報告されており⁴⁾、中高年に多い傾向がある。性別については、男性に多いとされている。発生部位は上唇と頬粘膜に多く、上唇が46.9%～48.7%、頬粘膜が30.1%～40.4%と報告されている⁴⁾。

小唾液腺唾石症は単発の限局した病変が多く、唾石の数も1個であることが多い⁵⁾。大多和ら⁶⁾は複

数の唾石を認めた小唾液腺唾石症を2例報告しているが、いずれも一か所の腫瘍状の病変内に複数の唾石を認めた症例であった。一方で、異なる部位に小唾液腺唾石が多発することはきわめてまれであり、本邦では相原ら⁷⁾による上下唇に多発した小唾液腺唾石症と、池田ら⁴⁾による上唇および両側頬粘膜に多発した小唾液腺唾石症の報告のみであった。相原ら⁷⁾の症例は触診で右側上唇、左側上唇、右側下唇にそれぞれ1個の硬固物を認め、自然排出されたものの組成分析を行ったのみであり病理組織学的な検討は行われていない。池田ら⁴⁾は上唇および両側頬粘膜の粘膜直下に10個程度の小腫瘍を触知しており、一か所からの生検で複数個の石灰化物を摘出し、周囲軟組織も含めた病理組織学的な検討が行われていた。本症例は池田ら⁴⁾の症例と比べ、年齢、性別や発生部位は類似しているが、池田ら⁴⁾は画像検査で唾石を描出できておらず、唾石の摘出も生検時の1回のみであった。それに対して本症例では咬合法およびCT検査で唾石の存在を確認できており、初回の生検を含めて合計4回の摘出手術を行った。

唾石の病理組織像は、壊死組織や細菌塊を核とした同心円状の層状構造を示すことが知られているが、Annerothら⁸⁾は経過の短いものでは全体的に均質で無構造な所見を示すことを報告している。本症例の場合、病理組織学的な検討は初回生検時の一度しか行っていないが、唾石はほぼ均一で無構造な石灰化物の外層の一部に層状構造を認めた。患者が多発する小腫瘍の存在を自覚したのは初診の約2か月前であり、比較的最近に唾石が形成されたものと推察される。小唾液腺唾石の発生に関しては、唾液腺または導管内において剥離上皮細胞、異物、細菌などの周囲に無機質が沈着することで石灰化を生じるためと考えられており、直接的な原因として外傷、咬傷、細菌感染などがあげられる⁹⁾。本症例の場合、外傷や咬傷の既往について明らかではないが、一部の小腫瘍からは少量の排膿を生じていたことから、小唾液腺への逆行性の細菌感染が原因となった可能性が考えられた。

結 語

今回われわれは、78歳男性の上下唇および両側頬粘膜に生じた多発小唾液腺唾石症のきわめてまれな1例を経験したので報告した。

文 献

- 1) Rauch, S and Gorlin, R.J.: Thoma's Oral Pathology, ed 6, 997-1003, Mosby, St. Louis, 1970.
- 2) 小林吉史ほか：小唾液腺唾石症の臨床病理学的検討。日口外誌 **36**：2622-2627, 1990.
- 3) 武田祥子ほか：唾石症に関する臨床的研究。日口外誌 **40**：155-160, 1994.
- 4) 池田 薫ほか：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。日口外誌 **51**：509-511, 2005.
- 5) 阿部廣幸ほか：小唾液腺唾石症の3例。口科誌 **34**：727-735, 1985.
- 6) 大多和薫ほか：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.
- 7) 相原悦二郎ほか：異なる小唾液腺に多発した唾石症の1例—との唾石の組成分析—。日口診誌 **15**：330-333, 2002.
- 8) Anneroth, *et al.*: Minor salivary gland calculi. A clinical and histopathological study of 49 cases. J Oral Surg **12**: 80-89, 1983.
- 9) 坂下英明ほか：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.

A case of multiple sialolithiasis in the minor salivary glands of lip and buccal mucosa

Tomohiro HAMAKAWA^{***}, Kazuki IWAMOTO^{*}, Masahide HYODO and Nagaaki TERAOKA^{DO}

^{*}Dentistry and Oral Surgery, Matsuyama Red Cross Hospital

^{**}Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Graduate School of Medicine, Ehime University

Sialolithiasis frequently occurs in the submandibular gland. The occurrence of sialolithiasis in minor salivary glands however is very rare. We report an extremely rare case of multiple sialolithiasis occurring in both the minor salivary glands of the upper and lower lip, and bilaterally in the buccal mucosa. A 78-year-old male noticed multiple small nodules in these aforementioned areas. We excised the lesion in the left buccal mucosa. Histopathologically, the lesion was diagnosed as sialolithiasis with chronic inflammation of the minor salivary glands.