

□ 症例報告

間質性肺炎，間質性腎炎を呈した潜在型1次性 Sjögren 症候群の
1 男性例：診断に耳下腺 MRI が有用であった症例

高村 昇・江口 勝美・右田 清志・塚田 敏昭
溝上 明成・折口 智樹・長瀧 重信
泉 雅浩*・中村 卓*

Jpn. J. Clin. Immun., 18 (1) : 123~132, 1995.

A male case of primary Sjögren's syndrome with interstitial pneumonitis and interstitial tubulo-nephritis in the absence of dry eye and dry mouth : parotid gland MRI is a useful diagnostic method for Sjögren's syndrome

Noboru Takamura, Katsumi Eguchi, Kiyoshi Migita, Toshiaki Tsukada,
Akinari Mizokami, Tomoki Origuchi, Shigenobu Nagataki,
Masahiro Izumi* and Takashi Nakamura*

First Department of Internal Medicine, Nagasaki University School of Medicine

**Department of Radiology, Nagasaki University School of Dentistry*

【Summary】

Here we report a case of primary Sjögren's syndrome with hilar lymphadenopathy, interstitial pneumonitis and interstitial tubulo-nephritis. A 60-year old man was admitted to our hospital in May 1993 because of general fatigue and fever.

He was noted to have hypergammaglobulinemia and had positive antibodies to nuclear antigens since 1990 in the absence of clinical manifestations. Since 9 months before admission, he presented with general fatigue, low grade fever and uveitis.

On admission, chest X-ray and CT scan showed bilateral hilar lymphadenopathy and interstitial pneumonitis. The negative results for both serum angiotensin converting enzyme and histological findings of the cervical lymph node and the lung excluded the diagnosis of sarcoidosis. Serological examination exhibited marked elevation of polyclonal IgG level and anti-nuclear antibody, but neither anti-SS-A (Ro) nor anti-SS-B (La) antibody was detected. He did not have symptoms of xerophthalmia and xerostomia. Keratoconjunctivitis sicca was diagnosed by positive Schirmer's and rose bengal tests. His labial gland biopsy demonstrated severe mononuclear cell infiltration around the ducts. MRI findings of

the parotid glands revealed heterogenous and dotted high signal intensity similar to those in fat tissues in the T1- and T2-weighted images. These findings depicted that bilateral parotid gland was extensively destructed and was replaced by lipid tissue. Renal biopsy showed interstitial tubulo-nephritis. On the basis of the above findings, he was diagnosed to have primary Sjögren's syndrome and uveitis. Therefore, MR image of the parotid gland is considered to be a noninvasive and useful method for diagnosis of Sjögren's syndrome.

Key words : Sjögren's syndrome,
MRI findings of parotid gland,
interstitial tubulo-nephritis,
uveitis

【概 要】

肺門部リンパ節腫脹, 間質性肺炎, 間質性腎炎を合併した Sjögren 症候群の男性症例を経験した。症例は 60 歳男性で, 57 歳時人間ドックで高γグロブリン血症を指摘された。主訴は全身倦怠感と発熱で当科に入院した。胸部 X 線と CT 検査で肺門部リンパ節腫脹と間質性肺炎の所見が得られた。入院 9 カ月前より両眼ぶどう膜炎あり, サルコイドーシスが疑われたが, ACE, リンパ節生検と肺生検から否定された。高γグロブリン血症と抗核抗体陽性から Sjögren 症候群が疑われたが, 眼・口腔乾燥症状はなかった。Schirmer テストと rose bengal テスト陽性から乾燥性角結膜炎があり, 小唾液腺生検では単核球の著しい浸潤が認められた。

耳下腺 MRI 所見では, T1 および T2 強調画像で多数の点状の高信号域のため不均一となっており, 耳下腺組織の破壊が高度で脂肪変性をきたしていると診断した。

腎生検所見では間質・尿細管の病変が著明でいわゆる tubulo-interstitial nephritis を示した。

本症例は男性で潜在型 Sjögren 症候群であり, 耳下腺 MRI 所見が本症の診断に有用であった。本検査は侵襲が少なく, Sjögren 症候群の診断法の 1 つとして繁用されることが期待される。

I. はじめに

Sjögren 症候群 (SjS) は涙腺や唾液腺を中心とする外分泌腺の分泌低下を特徴とした慢性炎症性疾患である。分泌低下は外分泌腺へのリンパ球 (主として CD4⁺ 細胞) と形質細胞の浸潤による 2 次的結果である。また, 抗 SS-A (Ro) 抗体や SS-B (La) 抗体が血中に検出され, 代表的な自己免疫疾患でもある^{1,2)}。

私たちは男性で, 両側肺門部リンパ節腫脹, 間質性肺炎, 間質性腎炎をきたしたのにもかかわらず, 眼・口腔乾燥症状のない 1 次性 SjS を経験した。

本症例はまれな症例であると同時に, 耳下腺 MRI 像が診断の一助となったと考えられ, 報告する。

II. 症 例

患 者: 60 歳, 男性, 元地方公務員。

主 訴: 全身倦怠感と発熱。

家族歴および生活歴: リウマチ性疾患 (-)。

既往歴: 高血圧と高尿酸血症 (57 歳)。

現病歴: 平成 2 年 7 月 (57 歳) 人間ドックで高血圧, 高尿酸血症と高ガンマグロブリン血症を指摘されたが, 臨床症状はなく放置していた。平成 3 年 7 月 (58 歳) 同じく人間ドックで高血圧, 高尿酸血症と血清 IgG 高値 (9,725 mg/dl), 抗核抗体陽性 (2,560 倍, 斑紋型) を指摘された。以後, 降圧剤および尿酸合成阻害剤の投薬を受けるようになる。平成 4 年 5 月 (59 歳) 38°C 前後の発熱が持続し, 某病院に入院した。咳嗽や喀痰はなかったが, 胸部 X 線や胸部 CT 検査から肺炎の診断を受けた。抗生物質の投与で解熱し, 約 2 週間で退院した。平成 4 年 9 月, 両眼に充血があり, 眼科医よりぶどう膜炎と診断され治療を受けた。平成 5 年 1 月 (60 歳) 全身倦怠感と発熱が持続し, 同時に軽度の咳嗽と喀痰あり, 精査のため某病院に 2 回目の入院をした。両下肺野に網状影と両側肺門部の拡大を指摘された。平成 5 年 5 月, 精査のために

当科に入院した。

入院時現症：栄養状態は良好。脈拍64/分、整。血圧120/70 mmHg。皮膚に特記すべき所見なし。眼瞼結膜に貧血なく、眼球結膜に黄疸なし。両眼にぶどう膜炎あり。口腔内の乾燥所見なし。左右の鎖骨上窩リンパ節を触知するが可動性良好で圧痛なし。甲状腺の腫大なし。胸部は外観に異常なし。心雑音は聴取せず、呼吸音では、両下肺野にVelcro音を聴取した。腹部は、平坦であり、肝、脾、腎は触知せず。聴診上、腸音の亢進はなく、神経学的にも異常所見を認めなかった。

入院時検査成績：表1に示すように、検尿、検便は異常なかった。検血では好酸球が7%で軽度増加していた。肝機能検査、電解質、血液ガスは異常なかったが、腎機能検査では尿素窒素、クレアチニン、 β 2-ミクログロブリン(血中および尿中)の増加を認め、クレアチニンクリアランスでは30 ml/分と腎機能の低下がみられた。血清蛋白は11.5 g/dlと著明に増加し、分画ではガンマグロブリンが56.9%と増加していた。免疫グロブリンではIgGが8,841 mg/dlであり、IgGのサブクラスはいずれのクラスでも増加し、免疫電気泳動ではポリクローナルパターンを示した。

表2に血清学的検査を示す。赤沈は高度に亢進していたが、CRPの増加は軽度であった。アンギオテンシン交換酵素、リウマトイド因子、クリオグロブリンはいずれも陰性であった。

自己抗体では、抗核抗体は160倍で斑紋型を示し、抗ssDNA抗体および抗dsDNA抗体は軽度に上昇していた。しかし、抗ENA抗体では抗SS-A (Ro)抗体および抗SS-B (La)抗体とも陰性を示した。血中免疫複合体の増加を認め、血清補体価、C3とC4は著明に低下し、C3a、C4aとC5aはいずれも高値を示し、補体系の消費の亢進がうかがわれた。

抗ウイルス抗体価では抗HCV抗体や抗HTLV-I抗体は陰性であった。リンパ球幼若化現象やリンパ球サブセットには異常を認めず、HLAはA2、A24、B51、Bw62、Cw3、DR4、DRw6、DQw7であった。

胸部X線検査(図1)では、右中下肺野と左下肺野に網状影が広がり、両側肺門部の腫大がみられた。胸部CT検査では、下肺野に著明な間質性の変化と肺門部リンパ節の腫脹を認めた。

呼吸機能検査では軽度の閉塞性障害を示した(表3)。気管支鏡検査では、気管支内腔がやや狭くなっ

表1 入院時検査成績(1)

検尿		肝機能検査	
蛋白	(-)	T. Bil	0.6 mg/dl
糖	(-)	GOT	22 U/l
沈渣	異常なし	GPT	11 U/l
pH	7.04	ALP	156 U/l
検便		LDH	300 U/l
潜血	(-)	CPK	46 U/l
虫卵	(-)	TTT	14.5 U/l
検血		ZTT	56.2 U/l
RBC	421 万/ μ l	電解質	
Hb	12.0 mg/dl	Na	144 mEq/l
Ht	38.3%	K	4.4 mEq/l
WBC	4,600/ μ l	Cl	105 mEq/l
St	3%	Ca	8.7 mEq/l
Seg	50%	P	4.6 mEq/l
Ly	32%	腎機能	
Mo	7%	BUN	24.0 mEq/l
EO	7%	Creat	1.7 mg/dl
Ba	1%	Ccr	30.0 ml/min
PL	23 万/ μ l	β ₂ -MG	
生化学		血液	10.0 mg/l
TP	11.5 g/dl	尿	1,047 μ g/l
Alb	31.5%	尿中 NAG	4.0 U/l
α ₁ -gl	1.6%	血液ガス	
α ₂ -gl	5.3%	pH	7.407
β -gl	4.7%	pCO ₂	39.6 mmHg
γ -gl	56.9%	pO ₂	89.1 mmHg
免疫グロブリン		HCO ₃	24.9 mEq/l
IgG	8,841 mg/dl	BE	0.9 mEq/l
IgA	238 mg/dl		
IgM	53 mg/dl		
IgG subclass			
G1	3,540 mg/dl (538-1244)		
G2	1,042 mg/dl (254-820)		
G3	142 mg/dl (LT 117)		
G4	1,028 mg/dl (LT 70)		

ており、そこに喀痰が多量に貯留していた。気管支肺胞洗浄液ではCD4/CD8比が3.40と増加していた。経気管支肺生検を施行したが、肉芽腫様およびリンパ腫様所見は認めなかった。

入院当初、両眼ぶどう膜炎、肺門部リンパ節腫脹、間質性肺炎像からサルコイドーシスを疑った。頸部リンパ節生検を施行したが、組織学的には非乾酪性肉芽腫形成などのサルコイドーシスに特徴的な所見は認められず、反応性リンパ節炎像であった。

次に、著明な高IgG血症や抗核抗体陽性からSjS

表 2 入院時検査成績 (2)

血清梅毒反応		抗ウイルス抗体価	
緒方法	(-)	抗 HBs 抗原	(-)
TPHA 法	(-)	抗 HBs 抗体	(-)
赤沈	137 mm/1hr	抗 HCV 抗体	(-)
CRP	0.71 mg/dl	抗 HTLV-1 抗体	(-)
ACE	4.9 mg/dl	抗 EB ウイルス抗体	
Lysozyme	38.6 μ g/dl	VCA IgG	1,280 倍
リウマトイド因子	(-)	VCA IgA	40 倍
クリオグロブリン	(-)	VCA IgM	<10 倍
自己抗体		EA-IgG	<10 倍
抗核抗体	160 倍(斑絞型)	EA-IgA	<10 倍
抗 ssDNA 抗体(<2.0)	19.9 IU/ml	EA-IgM	<10 倍
抗 dsDNA 抗体(<2.0)	5.2 IU/ml	EBNA	160 倍
抗 DNA 抗体 RIA(<7.0)	10.4 IU/ml	リンパ球幼若化現象	
抗 ENA 抗体(ELISA)		PHA	18,523 cpm
RNP(<15)	2.2	ConA	11,758 cpm
Sm(<15)	0.4	PWM	3,058 cpm
SS-A(<20)	2.2	Cont	647 cpm
SS-B(<25)	1.5	リンパ球サブセット	
Scl 70(<10)	0.0	CD 3	80.0%
免疫複合体(MRF 法)	26.0 mcg/ml	CD 4	39.9%
血清補体価	<5 CH 50 U/ml	CD 8	33.4%
C 3	25 mg/dl	CD 19	8.4%
C 4	2.9 mg/dl	CD 20	6.1%
C 3 a	1,855.0 ng/dl	CD 21	3.2%
C 4 a	1,290.0 ng/dl	CD 24	5.3%
C 5 a	16.0 ng/dl	SMIg	4.3%
HLA		IgG	1.4%
HLA-A	2, 24(9)	IgA	<0.1%
HLA-B	51(5), W 62(15)	IgM	11.9%
HLA-C	W 3, (-)	IgD	2.4%
HLA-DR	4, W 6		
HLA-DQ	W 7, (-)		

を疑い検索を進めた。眼および口腔内乾燥症状は自覚していなかったが、検査では Schirmer テストと rose bengal テストではいずれも陽性であった。一方、ガムテストやサクソソテストは正常で唾液分泌の低下を認めなかったが、小唾液腺生検組織では図 2 に示すように導管周囲に多数の単核球集簇像がみられた。Ga シンチグラムでは両側顎下腺、縦隔肺門部、下肺野と腎に取り込みの増加がみられた。耳下腺 MRI 像は T1 強調画像(図 3)では両側耳下腺は不均一となっており、全体が周囲の脂肪組織と同程度に近い高信号をきたし、T2 強調画像でも多数の点状の高信号域が認められた。この MRI 像から耳下腺組織は破壊が高度で、脂肪変性をきたしていると診断された。

腎機能低下所見より腎生検を施行した。図 4 a に示すように間質性病変が著明で、間質に強い線維化と細胞浸潤がみられ、尿細管は萎縮し、線維化の強い部位では消失・脱落を呈していた。血管では弓状動脈と輸入動脈の内膜の硝子様変化がみられた。糸球体は 18 個中 8 個は硝子化ないし硬化像を示し、残りの糸球体は増殖性変化に乏しく、糸球体基底膜の肥厚もみられなかった(図 4 b)。すなわち、本例では硝子化糸球体は動脈硬化に伴う腎硬化症によるものと考えられ、病変の主座は間質や尿細管にあり、いわゆる tubulo-interstitial nephritis 像を示した。なお、蛍光抗体法では糸球体が標本中に存在しなかったが血管壁に IgG と C1q の沈着を認めた。

間質性腎炎による尿管アシドーシスが疑われ、 NH_4Cl 負荷試験を行った。尿の pH は 6.81 までしか低下せず、負荷試験は陽性で尿の酸性化障害が考えられた。

入院後の経過：Shirmer テスト、rose bengal テスト、抗核抗体、小唾液腺生検や唾液腺 MRI 像から SjS と診断した。間質性肺炎、肺門部リンパ節腫脹や間質性腎炎はサルコイドーシスの合併は否定でき、本症による腺外症状と考えられた。プレドニゾロン 30 mg/日を経口連日投与を開始した (図 5)。投与 1 カ月目には胸部 X 線で、肺門部リンパ節腫脹は消失し、両下肺の網状影も軽減した。腎機能検査でも血清尿素窒素およびクレアチニンは正常域まで減少し、クレアチニンクリアランスも 46.8 ml/分まで回復した。また、血清学的検査でも血清補体価も正常域まで増加し、IgG も 2,547 mg/dl と著明に減少した。

III. 考 察

本症例は両側肺門部リンパ節腫脹、間質性肺炎と間質性腎炎をきたした 1 次性 SjS であり、眼・口腔内乾燥症状は自覚しておらず、いわゆる潜在型 SjS と診断された。1 次性 SjS は欧米の報告では HLA-B 8, DR 3, DRw 52 を保有している症例が多いのに反し、2 次性 SjS は HLA-DR 4 を有するものが多い^{3,4)}。本症例は HLA-DR 4 であったが、明らかな膠原病の合併はみられなかった。

本症の診断は男性で、ぶどう膜炎、間質性肺炎、両側肺門部リンパ節腫脹が存在したことから入院当初サルコイドーシスが最も疑われた。しかし、アンギオテンシン変換酵素の増加はなく、リンパ節生検や肺生検から乾酪性肉芽腫性変化を認めないことよりサルコイドーシスは否定された。

次に、本症例では血中免疫複合体の増加、血清補体価の低値、C 3 a や C 4 a の高値から免疫複合体による補体の消費亢進をうかがうことができた。ELISA 法で測定した抗 dsDNA 抗体や RIA 法で測定した抗 DNA 抗体が軽度増加していたことから全身性エリテマトーデスの診断も考えられた。しかし、本症例の場合 1982 年 ARA の SLE 改訂分類基準⁵⁾に照らし合わせても抗 DNA 抗体と抗核抗体の 2 項目しか合致しなかった。さらに、本症例の腎生検組織では糸球体の増殖性変化や基底膜肥厚は軽度でむしろ間質性変化が強く、いわゆる tubulo-interstitial nephritis を示した。以上のことより、SLE は否定された。

表 3 特殊検査

1. 肺機能検査	
(1) 呼吸機能検査	
肺活量	4.65 l
%VC	135.2%
FEV 1.0%	65.5%
(2) 気管支鏡所見:	
内腔やや細くなり喀痰多量あり	
(3) 気管支肺胞洗浄液	
Total cell count	2.56×10^7
M ϕ	43.4%
Neutro	5.4%
Eo	0.2%
Lymph	51.0%
CD 3 ⁺	96.9%
CD 4 ⁺	79.9%
CD 8 ⁺	23.5%
IL-2 R ⁺	2.1%
CD 4 ⁺ /CD 8 ⁺	3.40
(4) 肺生検	
肉芽腫様およびリンパ腫種所見なし	
2. 涙腺機能検査	
(1) Shirmer テスト	3 mm
(2) Rose Bengal テスト	(#)
3. 唾液腺機能検査	
(1) ガムテスト	12 ml (正常)
(2) サクソソテスト	4 g (正常)
(3) 耳下腺 MRI 像	
高度の耳下腺組織の破壊と脂肪変性	
(4) 小唾液腺生検	
単核球浸潤著明 (Greenspan, grade 4)	
4. 腎機能検査	
・レノグラム: 両腎ともピークが不明瞭で排泄相も明らかに遅延している。	
・ NH_4Cl 負荷試験: 陽性(尿水 pH 6.81 までしか低下しなかった)。	
・腎生検:	
光顕: tubulo-interstitial nephritis	
免疫組織染色蛍光抗体法: 糸球体は標本中にみられず、血管に IgG, C1q の沈着がみられた。	

本症例には 1 次性 SjS として非典型的な所見がいくつかあげられる。第 1 に、本症例は男性例であり、1 次性 SjS は 40 歳から 50 歳台の女性に多くみられ、男性では 10% 以下と報告されている^{1,2)}。

第 2 に、本症例ではぶどう膜炎の既往歴があるが、ぶどう膜炎が 1 次性 SjS の症状とする報告は見当たらない^{1,2)}。私たちは 1 次性 SjS 患者は抗 HTLV-I

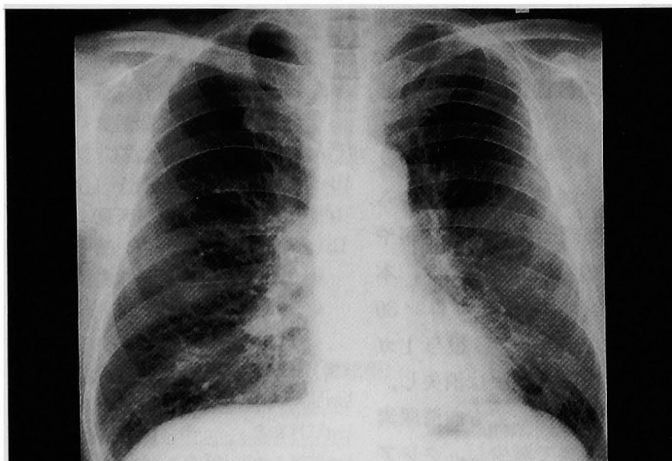


図 1 胸部X線

右肺門から肺門下部まで腫大し、左肺門も軽度腫大している。右中下肺野と左下肺野網状影がみられる。

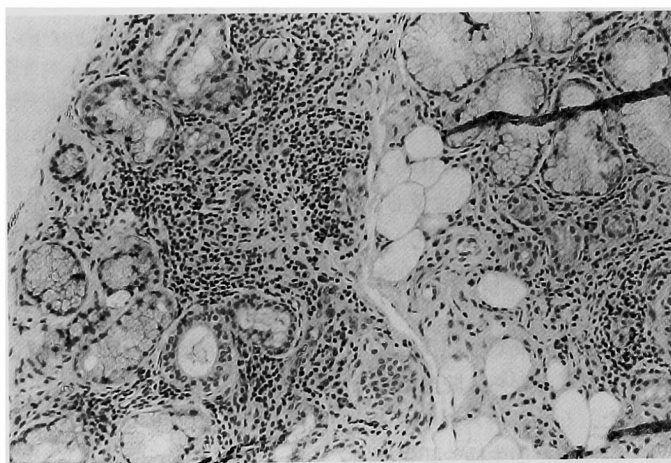


図 2 小唾液腺生検組織像

単核球の集簇像がみられる。

抗体陽性の頻度が疫学的に高いことを報告した^{6,7)}。この抗 HTLV-I 抗体陽性 SjS 患者にぶどう膜炎を合併した症例を経験している⁸⁾。そして、ぶどう膜炎患者においても HTLV-I キャリアが多いことから、ぶどう膜炎の病因の 1 つに HTLV-I が想定されている⁸⁾。今回の症例では抗 HTLV-I 抗体は Western blot 法を用いて陰性であることを確認した。しかし、最近、抗 HTLV-I 抗体陰性 SjS 患者の小唾液腺組織で HTLV-I tax mRNA が検出されており^{9,10)}、endogenous virus を含め、さらに検討が必要である^{11,12)}。

第 3 に、本症例は著明な抗 IgG 血症と抗核抗体高値にもかかわらず、1 次性 SjS に特異的とされる抗 SS-A (Ro) 抗体や抗 SS-B (La) 抗体は陰性であった。HIV 感染者にも SjS 様症状をきたすことが知られ、HIV 感染による SjS にはこれら自己抗体の検出率が低いことが報告されている¹³⁾。自己免疫疾患に共通して考えられていることだが、SjS の病因が各種ウイルス、同種移植片拒絶反応など多くがあげられ、多様であることが想定されている^{1,2)}。本症例の場合、抗 SS-A 抗体および抗 SS-B 抗体ともに陰性であったことは男性で、ぶどう膜炎を合併していたことなど

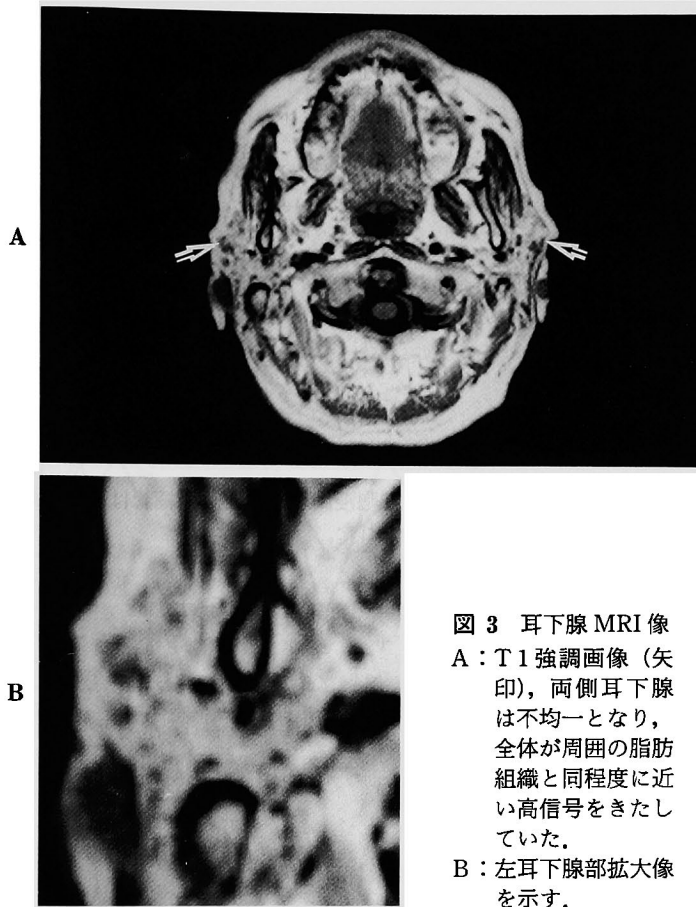


図3 耳下腺 MRI 像

A : T1 強調画像 (矢印), 両側耳下腺は不均一となり, 全体が周囲の脂肪組織と同程度に近い高信号をきたしていた。
B : 左耳下腺部拡大像を示す。

通常の SjS と異なる点と関係があるかもしれない。

最後に, 本症例では血清補体低値, 免疫複合体高値, C3a や C4a 高値などから免疫複合体病が示唆された。しかし, 腎生検では糸球体病変より間質および尿細管病変が主体であった。蛍光抗体法では腎血管壁へ IgG や C1q の沈着を認め, 血管炎が示唆された。しかし, 蛍光抗体法用の組織標本には糸球体が含まれておらず, 糸球体への免疫グロブリンや補体分解産物の沈着を確認できなかった。私たちは血清補体低値を伴った 1 次性 SjS で慢性増殖性糸球体腎炎をきたした症例を経験しており¹⁴⁾, 血管炎をはじめ糸球体病変形成に免疫複合体形成が関与していることが示唆された。

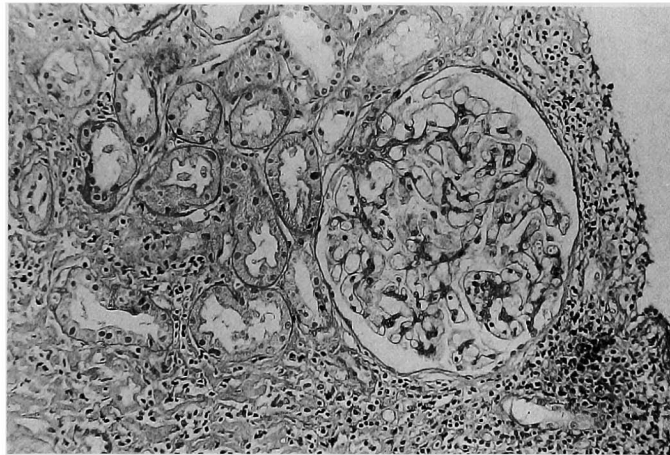
次に, 1 次性 SjS の診断法について考察する。抗 SS-A (Ro) 抗体や抗 SS-B (La) 抗体などの自己抗体の検出が一般に普及するにつれて, 1 次性 SjS の患者には高 γ グロブリン血症や抗核抗体陽性が検出されてから, 眼・口腔乾燥症状や所見が出現するまで数

年から数十年かかる症例が報告されるようになった¹⁵⁾。このようにまだ口腔乾燥症状や所見がない症例で SjS の確定診断をくだすことは一般には難しい。SjS の診断基準は世界的にもいくつか研究グループから提唱されているが¹⁶⁾, 世界的に認められた診断基準は今までのところ存在しない。1986 年第 2 回国際 SjS シンポジウムの診断基準に本症例を照らし合わせると¹⁷⁾, 1) Shirmer テスト, rose bengal テストが陽性であること, 2) 小唾液腺生検における単核球の浸潤をみること, 3) 抗核抗体陽性から, 一応 SjS が疑われるが, 眼・口腔乾燥症状がないことから確定診断できない。また, 最近ヨーロッパグループから提唱された予備診断基準¹⁸⁾でも唾液腺シンチグラムや唾液腺造影の陽性所見が得られておらず, 確定診断できない。

私たちは耳下腺 MRI 所見が本症例の診断に有用であることを報告した¹⁹⁾。本症例の場合, T1 強調画像では耳下腺が不均一になっており, 周囲の脂肪と同程



(A) 間質病変が著明で間質の強い線維化と細胞浸潤を示した。尿管は萎縮を示した。また、弓状動脈の内膜の硝子様変化がみられた。



(B) 硝子化をまぬがれた糸球体は増殖性変化に乏しく、糸球体基底膜の肥厚も得られなかった。

図 4 腎生検組織像

度に近い高信号域がみられ、T2強調画像では多数の点状高信号を認めた。この所見から判定するとSjSに特徴的で、耳下腺破壊が高度に進行し、脂肪変性に陥っていることが示唆された。さらに、私たちの成績では耳下腺MRI像は小唾液腺生検像(Greenspan分類)と唾液腺造影所見(Rubin Holt分類)とよく相関した。本症例の場合、耳下腺MRI像も小唾液腺生検像も高度な病変がみられた。一方、唾液腺造影は患者がヨードアレルギーのため、施行できず対比することができなかった。耳下腺の高度破壊にもかかわらず、明らかな唾液分泌の低下を認めなかった原因は現

在のところ不明であるが、Gaシンチグラムで顎下腺に取り込みの増加があり、これはステロイド治療によって消失した。このことは、耳下腺と顎下腺が必ずしも同程度に障害されていないことを示しているかもしれない。本症例のように口腔内乾燥症状や所見がなくても小唾液腺の組織的变化や耳下腺MRI像に変化がみられることに臨床留意する必要がある。そして耳下腺MRI像が本症の診断に有用であり、今後、非侵襲性の耳下腺MRIがSjSの診断法の1つとして繁用されることが期待される。

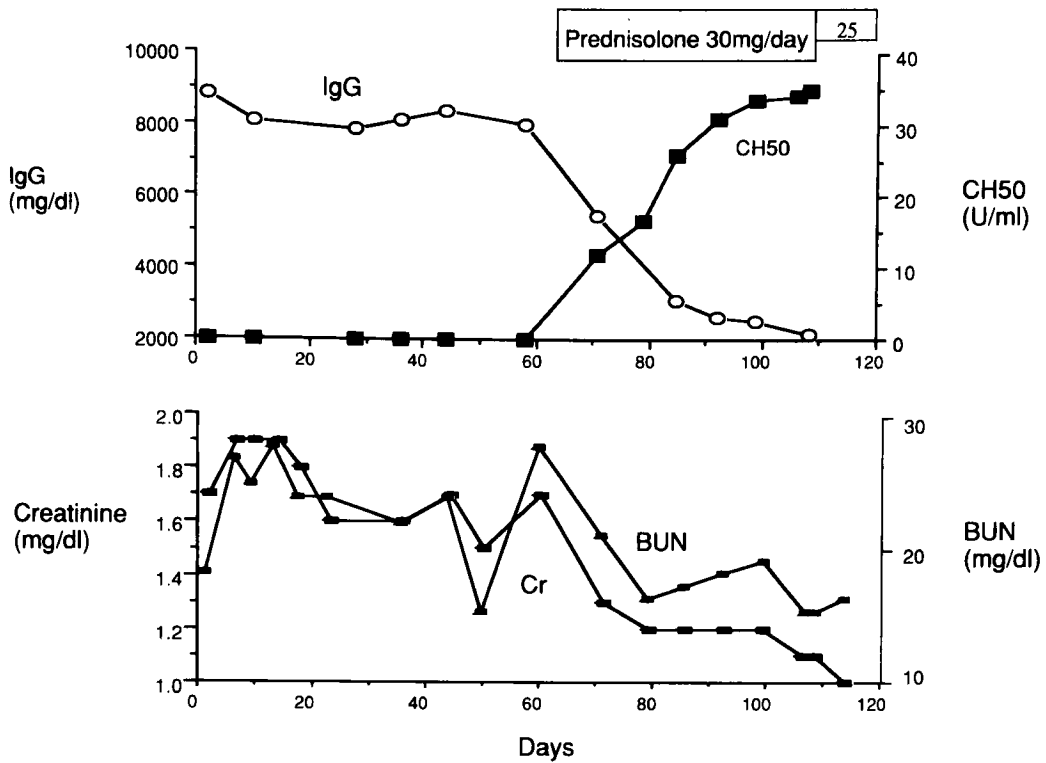


図5 本症例の治療経過

文 献

- 1) Talal, N. : Sjögren's syndrome and connective tissue diseases associated with other immunologic disorders. *Arthritis and Allied Conditions*. Eds, McCarty, R.J., Koopman, W. J. Lea & Febiger (Philadelphia) p. 1343~1356, 1993.
- 2) Fox, R.I, Kang, H-II : Sjögren's syndrome. *Textbook of Rheumatology*. Eds, Kelley, W. N., Harris, Jr., E.D., Ruddy, S., Sledge, C.B. W.B. Saunders Company (Philadelphia) p. 931~942, 1993.
- 3) Provost, T.T., Talal, N., Bias, W. et al. : Ro (SS-A) positive Sjögren's/lupus erythematosus (SC/LE) overlap patients are associated with the HLA-DR3 and/or DRw6 phenotypes. *J. Invest. Dermatol.*, 91 : 369~371, 1988.
- 4) Pease, C.T., Shattles, W., Charles, P.J. et al. : Clinical, serological, and HLA phenotype subsets in Sjögren's syndrome. *Clin. Exp. Rheumatol.*, 7 : 185~190, 1989.
- 5) Tan, E.M., Cohen, A.S., Fries, J.F. et al. : The 1982 revised criteria for the classification of systemic lupus erythematosus. *Arthritis Rheum.*, 25 : 1271~1277, 1982.
- 6) Eguchi, K., Matsuoka, N., Ida, H. et al. : Primary Sjögren's syndrome with antibodies to HTLV-I : clinical and laboratory features. *Ann. Rheum. Dis.*, 51 : 769~773, 1992.
- 7) Terada, K., Katamine, S., Eguchi, K. et al. : Sjögren's syndrome in an HTLV-I endemic area in Japan : high seroprevalence and preferential occurrence of IgA class antibodies to HTLV-I in saliva. *Lancet*, 344 : in press, 1994.
- 8) Mochizuki, M., Watanabe, T., Yamaguchi, K.

- et al. : HTLV- I uveitis : a distinct clinical entity caused by HTLV- I . Jap. J. Cancer Res., 83 : 236~239, 1992.
- 9) Mariette, X., Agbalika, F., Daniel, M-T. et al. : Detection of human T lymphotropic virus type I tax gene in salivary gland, epithelium from two patients with Sjögren's syndrome. Arthritis Rheum., 36 : 1423~1428, 1993.
- 10) Sumida, T., Yonaha, F., Maeda, T., Kita, Y., Iwamoto, I., Koike, T., Yoshida, S. : Expression of sequences homologous to HTLV- I tax gene in the labial salivary glands of Japanese patients with Sjögren's syndrome. Arthritis Rheum., 37 : 545~550, 1994.
- 11) Garry, R.F. : New evidence for involvement of retroviruses in Sjögren's syndrome and other autoimmune disease. Arthritis Rheum., 37 : 465~469, 1994.
- 12) Daenke, S., Bangham, C.R.M. : Do T cells cause HTLV- I -associated disease ? : a taxing problem. Clin. Exp. Immunol., 96 : 179~181, 1994.
- 13) Itescu, S., Brancato, L.J., Winchester, R. : A sicca syndrome in HIV infection : association with HLA-DR 5 and CD 8 lymphocytosis. Lancet, 2 : 466~468, 1989.
- 14) 塚田敏昭・江口勝美・喜多雅子・他. : 低補体血症と慢性増殖性糸球体腎炎を伴ったシェーグレン症候群の一例. 九州リウマチ, 13 : 217~222, 1994.
- 15) 井手 茜・江口勝美・溝上明成・他. : 高 γ グロブリン血症から長期間経過してシェーグレン症候群と全身性エリテマトーデスを発症した1例. 日臨免誌, accepted, 1994.
- 16) 東條 毅・秋谷久美子 : Sjögren 症候群の診断基準. 医学のあゆみ, 163 : 29~34, 1992.
- 17) Fox, R.I., Robinson, C., Curd, J. et al. : First International symposium on Sjögren's syndrome : Suggested criteria for classification. Scand. J. Rheumatol., 61(Suppl) : 28~30, 1986.
- 18) Vitali, C., Bonbardieri, S.M., Outsopoulos, H. M. et al. : Preliminary criteria for the classification of Sjögren's syndrome. results of a prospective concerted action supported by european community. Arthritis Rheum., 36 : 340~347, 1993.
- 19) Izumi, M., Eguchi, K., Uetani, M. et al. : MR imaging of the parotid and lacrimal glands in Sjögren's syndrome : a proposal for new diagnostic method. Arthritis Rheum. submitted, 1994.
-