耳下腺原発放線菌症の一例

谷垣内由之・古内 一郎

Primary Parotid Gland Actinomycosis

—A Case Report—

Yoshiyuki Tanigaito and Ichiro Furuuchi

(Dokkyo University School of Medicine)

A 47-year-old man visited our outpatient clinic complaining of a tumor in the right preauricular region. The tumor was diagnosed clinically as parotid gland tumor and was completely extirpated surgically. The histopathological diagnosis was actinomycosis. Most cases of actinomycosis occur in the head and neck region, but the primary parotid gland actinomycosis is very rare.

Key words: actinomycosis, parotid gland, primary

はじめに

放線菌は、口腔咽頭にしばしば非病原性に存在し、人で放線菌症をおこすことはまれとされている。しかし、時には組織内に侵入して、顔面頸部、胸腔、腹腔等に放線菌症を発症する。そしてこれら症例の多くは顔面頸部に発症するが、耳下腺原発のものは少なく、報告例もほとんどない。

今回我々は耳下腺原発と思われる放線菌症の一例を治療する機会を得たため若干の考察を加え報告する。

症 例

47才、男性、XXXXXXXXXX

初診：昭和59年9月18日。

主訴：右耳前部腫瘍。

現病歴：昭和59年8月中頃右耳前部に硬い腫瘍があるのに気づいた。発熱、疼痛はなかった。9月はじめ、圧迫により右側頭部に軽度の

放散痛が生じるようになったため、某医受診、耳下腺腫瘍を疑われ当科を紹介された。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：10年前糖尿病を指摘され、現在も某医で通院内服治療を行っている。

初診時所見：右耳前部に母指頭大の表面平滑、境界やや不明瞭な硬い腫瘍があり、軽度の圧痛を認めた（図1）。波動は触れなかった。腫瘍の可動性にはやや制限があり深部での癒着が疑われたが、顔面神経麻痺はなかった。頸部リンパ節は、対側の上深頸リンパ節が1個触知された。しかし、同側では触れなかった。

口腔咽頭に著変がなく、開口障害もなかった。耳下腺圧迫によるステノン氏管からの膿汁の排出もみなかった。

検査：WBC 6,600 (St 7%, Seg 54%, Ba 1%, Mono 1%, Lymph 32%, At Lymph 1%) RBC 396万、血沈 14mm/1hr, CRP (—)

血清アミラーゼ値 76U/dl で特に耳下腺炎を思わせる所見はなかった。RA(-), ASLO 80倍, IgG 1370mg/dl, IgA 145mg/dl, IgM 140 mg/dl, IgD 20mg/dl, 肝機能, 電解質, 正常, 胸部X線検査では, 軽度の心肥大と気管支炎の像があるものの他に著変なく, 心電図も正常であった。

しかし空腹時血糖値は 138mg/dl, 尿糖 (+) で75g 糖負荷検査を行ったところ表1のような結果を得, 糖尿病と診断された。

耳下腺造影では, 導管が一部細くなり圧迫された像はあるが, 断裂や漏洩像等の悪性腫瘍を思わせる所見はなく, 特殊な炎症所見もなかった (図2)。耳下腺造影CTでは, 耳下腺内に周囲との境界が不明瞭な腫瘤による欠損像を認めた (図3)。超音波エコーでは, ほぼ均一な内部エコーをもつ長径約2cmの円形で隔壁のある腫瘤像が得られた (図4)。

図1 右耳前部に硬い腫瘤を触れる

表1 75g ブドウ糖負荷試験

	血糖値 (mg/dl)	尿糖値 (g/dl)
空腹時	130	0.1以下
30分後	210	
60分後	269	1.49
90分後	310	
120分後	296	5.38
150分後	294	
180分後	247	5.18

治療: 以上の検査所見から耳下腺腫瘍と診断し手術を行った。術前糖尿病のコントロールのため 1,600Cal で食事療法を行った。

手術は, 耳前部から下顎角部にかけて逆S字状皮切を入れ, 顔面神経を本幹から分枝にかけ剥離露出し, 腫瘤部を周囲正常耳下腺組織とともに一塊にして切除した。切除に際し顔面神経の分枝の一本が腫瘤部と剥離できず切断した。また後面では咬筋と一部癒着があり, 咬筋も外側の一部を腫瘤につけ切除した。切除後剖面を入

図2 右耳下腺造影

図3 CT像 (耳下腺造影後)

れると、内部は膿瘍を形成しており、一部の組織は壊死に陥り黄色クリーム状の膿汁が貯留していた。この時点で炎症による膿瘍と診断された。悪性腫瘍が否定されたため、それ以上の腺の摘出はせず、ドレーンを入れ一時的に術創を閉鎖した。

膿汁内には、いわゆる“ドルーゼ”は明らかでなく、一般菌による膿瘍あるいは結核性病変等が考えられた。しかし膿汁の細菌検査では、一般細菌、結菌核ともに陰性であった。組織学的検査では、軽度の炎症性変化を呈する耳下腺組織内に、非特異的な膿瘍の像があり、その中心部に特徴的な放線菌の菌塊が認められ、病理

学的に放線菌症と診断された(図5, 6)。

その後口腔内から放線菌の培養検査を行ったが陰性であった。

術直後は放線菌症と診断されず、セフェム系抗生物質の点滴及び内服を行った。組織学的に診断された時点では、創は治癒の状態になっていたため特殊な治療することなく退院した。

以後外来通院観察を行っているが、再発は認められていない。術後顔面神経不全麻痺が、右上口唇に認められたが、約半年後に軽快消失した。

考 按

放線菌症は抗生物質の進歩とともに近年見ることの少なくなってきた疾患である。しかし、発症部位からすると Bennhoff¹⁾ によれば、全体の41%、Weese ら²⁾ によれば55%、美甘ら³⁾ によれば67%が顔面頸部に発症するとされ、耳鼻咽喉科、頭頸部外科医にとってなお忘れてはならない疾患の一つである。

放線菌 (*Actinomyces*) は真菌と細菌の中間に位置するとされるが、種々の点から、細菌により近いものと考えられている。*Actinomyces* は *Actinomycetales* 目に入り、この目は結核菌や、ライ菌を含む *Mycobacteriaceae* 科と *Actinomycetes* 科に分けられる。*Actinomycetes* 科には *Actinomyces* 属、*Arachnia* 属、*Nocardia* 属、*Actinomadura* 属、*Streptomyces* 属がある。*Actinomyces*

図4 超音波エコー

図5 H E 染色による組織像
Eosin に染まる菌塊の周囲には著明な炎症細胞浸潤があり、一部には残存した耳下腺組織を認める。

図6 グラム染色、多数のグラム陽性の菌糸体を認める。

属は5種に分けられ、その中には *Actinomyces israelii* や *Actinomyces bovis* 等がある。人間から分離される株はすべて *Actinomyces israelii* であり、牛からの分離の大部分は、*Actinomyces bovis* である。

Actinomyces israelii の名前は、1891年 Israel が人放線菌症から病原菌として嫌気性菌を分離したことによりつけられた名前である⁴⁾。放線菌症の最初の報告は家畜では、1826年の LeBlanc、人では1845年に Von Langenbeck が行っている⁵⁾。

かつて放線菌症は、草やワラなどに存在する放線菌が人の体内に入ることにより発症すると考えられていた。現在 *Actinomyces israelii* は人の口腔咽頭に寄生的に存在し、土や植物からは分離されないとされている⁶⁾。

放線菌の一般的な発症経過は、口腔咽頭の小さな傷や齧歯、扁桃から放線菌が組織内に侵入し、初期には無痛性で、波動の触れる mass を下顎縁近くに形成し、しだいに有痛性となり、びまん性腫脹を生じる。直接的に周囲に広がるのが普通で、リンパ、血行性に広がることは少なく、リンパ節腫脹は初期には認められないことが多い。さらに病変部は皮膚の変色をともし、しだいに板状硬となり、治癒傾向のない多発性瘻孔を形成し排膿する。この膿汁中に sulphur granule いわゆる“ドルーゼ”が認められ診断の糸口になることがある。治療されずに放置されると骨を犯し、骨髓に入るとすみやかに広がり、頭蓋骨や頸椎に広がれば、meningitis や死に到ることもある。一方放線菌は、それのみでは典型的な病変を形成しないともされ⁷⁾ 発症には、菌の組織内侵入以外の何らかの要因があるものと思われる。

以上のように放線菌症は、顔面頸部に発症しやすいが、耳下腺原発のものは少なく、本邦においては、山口⁸⁾、渡辺⁹⁾ の報告があるのみである。Bennhoff¹⁾ の32例の放線菌症の報告でも、唾液腺に発症したものは顎下腺の一例のみで、耳下腺に原発したものはない。

今回の我々の症例は、現病歴からして口腔から組織内に侵入した菌の炎症が耳下腺に波及したとは考えられず、開口障害もなく、CTや耳下腺造影、組織学的検査からして耳下腺原発の放線菌症と思われるまれな症例と考えられた。しかしながら、典型的な皮膚の変色や板状硬結等の触診所見、瘻孔もなく、放線菌症よりむしろ腫瘍との鑑別が問題であった。

近年栄養状態が改善され、抗生物質が進歩し、放線菌症そのものの減少に加え、病態それ自体が軽症化し、典型的な症例が少なくなってきたおり、本症例のような限局性腫瘍形成型のものが増加していると思われる。今回の症例は他に基礎疾患として糖尿病に罹患していたが、コントロールされておらず、これも発症の要因の一つと考えられた。渡辺⁹⁾ の症例も糖尿病を合併しており、こうした基礎疾患をもつ者が増加してきている現在、限局性の腫瘍をみた場合、放線菌症も鑑別すべき疾患の一つとして考慮に入れておく必要がある。

放線菌症には、ペニシリンが第一選択とされるが、一度膿瘍を形成した場合は、開放術を始めとする積極的な外科処置が必要であり、この後の十分な抗生物質の投与が治癒、再発予防に重要である。また本症例のように限局性に腫瘍を形成している場合は、周囲組織とともに完全切除ができれば、術後、ペニシリンを長期投与しなくても治癒するものと思われた。

文 献

- 1) David F and Bennhoff MD : Actinomycosis : Diagnostic and therapeutic considerations and a review of 32 cases. Laryngoscope 94 : 1198~1217, 1984.
- 2) Weese WC and Smith IM : A study of 57 cases of actinomycosis occurred a 36-year period. A diagnostic failure with good prognosis after treatment. Arch Intern Med 135 : 1562~1568, 1975.
- 3) 美甘義夫, 福島孝吉 : 日本に於ける内科的真菌症

について. 日化学療会誌 6 : 127~144, 1958.

- 4) Rippon JW : Medical Mycology. pp 13~28, Saunders WB, Philadelphia, 1974.
- 5) Richtsmeier WJ and Johns ME : Actinomycosis of the head and neck. CRC Crit Rev Clin Lab Sci 11 : 175~202, 1979.
- 6) Youmans G, Paterson P and Sommers H : The biologic and clinical basis of infectious disease 2nd ed. pp 13, 89, 286~298, Saunders WB, Philadelphia, 1980.
- 7) Brown JR and Lichtenberg Fv : Experimental actinomycosis in mice. Study of pathogenesis. Arch Path 90 : 391~402, 1970.
- 8) 山口宗彦, 嶋田文之, 金子敏郎, 他 : 耳下腺部に見られた放線菌症について. 日耳鼻 75 : 565~569, 1972.
- 9) 渡辺 俊, 松尾浩一, 進 武幹, 他 : 耳下腺に原発した放線菌症の1症例. 耳鼻 29 : 451~455, 1983.

原稿採択 : 昭和61年5月12日
別刷請求先 : 谷垣内由之
〒321-02 栃木県下都賀郡壬生町
大字北小林880番地
独協医科大学耳鼻咽喉科学教室