耳 下 腺 結 核 の 2 例

野々山 勉・臼井 智子・西城隆一郎

Two Cases of Tuberculosis of the Parotid Gland

Tsutomu Nonoyama, Satoko Usui and Ryuichirou Saijou

(Saiseikai Matsusaka General Hospital)

Tuberculosis of the parotid gland is not a common disease. We reported here two cases of tuberculosis of the parotid gland. The first case is a 78-year-old man who had a left parotid gland mass for 10 years. We suspected pleomorphic adenoma from the preoperative findings of MRI and performed a parotidectomy. Postoperative pathological findings showed a Warthin's tumor of the parotid gland with tuberculosis. We realized that this case was very rare.

The second case is a 76-year-old woman who had had a left parotid gland mass for 1 month. The mass had rapidly enlarged and adhered to the skin, in addition to the skin becoming reddish. She complained of tenderness at the mass. We suspected a malignant tumor of the parotid gland and performed surgical resections with the skin. Postoperative pathological findings showed tuberculosis of the parotid gland.

Tuberculosis is one of the most important of the re-emerging infectious diseases in the world. We should always consider tuberculosis, because early diagnosis and treatment are mandatory.

Key words : tuberculosis, parotid tumor, parotid gland, Warthin's tumor

はじめに

近年、結核は減少傾向にあったが、その減少率は鈍化し、1997年には43年ぶりに罹患率が反転上昇し、新規登録患者数も38年ぶりに前年より増加しており、再興感染症として注目されている¹⁾。頭頸部領域においても常に考慮すべき疾患の一つと考えられるが、今回われわれは、肺外結核のなかでも比較的まれと考えられる2例の耳下腺結核を経験し、さらにこのうち1例はワルチン腫瘍と結核性病変との合併が認められたため報告する。

症 例

症例1: 78歳、男性。

主訴: 左耳下部腫瘍。

既往歴・家族歴: 特記事項なし、結核なし。

現病歴: 約10年前に左耳下部の腫瘍に気付いたが増大しないため放置していた。1999年腫瘍に増大傾向を認めた

ため同年10月5日当科外来を初診した。

初診時所見: 左耳下部に35×25mm大、弾性硬、皮膚との癒着はなく可動性のある腫瘍を認め、疼痛・圧痛・顔面神経麻痺は認めなかった。

MRI所見: T2強調画像では左耳下腺部に内部が低信号で不均一、境界明瞭な腫瘍を認め(図1)、T1強調画像において内部は不均一に造影効果を示した(図2)。

エコー所見: 左耳下腺内に内部エコー不均一、境界明瞭な充実性腫瘍を認めた。

以上の所見より多形腺腫を疑い、1999年12月9日手術を施行した。腫瘍は耳下腺浅葉上極を中心に存在し、周囲の正常耳下腺組織とともに摘出したが、顔面神経との癒着は認めなかった。術中迅速病理検査ではワルチン腫瘍と診断され、摘出標本は37×28×22mm大、断面は黄色充実性粥状であった(図3)。

病理組織所見: 図4aはワルチン腫瘍の部位であり高円

図 1 症例 1 MRI T2 強調画像

内部低信号で不均一，境界明瞭な腫瘤陰影を認める。

図 2 症例 1 MRI T1 強調画像

内部は不均一に造影効果を示した。

柱上皮細胞の乳頭状発育を認め，間質にはリンパ球の増殖を認める。図 4b は同じ腫瘍内に認められた結核性病変部位で，ワルチン腫瘍とは別個に孤立性に認められ，乾酪様壊死を伴う肉芽腫周辺に類上皮細胞，ラングハンス巨細胞と著明なリンパ球浸潤を示している。

術後経過：病理組織検査において前述のごとく同一腫瘍内にワルチン腫瘍とともに結核性病変の合併が認められたため，耳下腺結核を合併したワルチン腫瘍と診断し，術後に諸検査を行った。ツベルクリン反応は中等度陽性，赤沈は 1 時間値 111 mm，2 時間値 130 mm と非常に亢進

していた。その他，喀痰培養・塗抹検査，PCR 法，胃液培養・塗抹検査はすべて陰性であり，肺 CT においても結核を示唆する所見は認められなかった。術後治療を当院内科へ依頼しところ，胃潰瘍あるいは早期胃癌を示唆する所見があり，またこの時点で結核性病変を含む腫瘍の外科的摘出により赤沈が正常化していたこともあり，内科医の判断で抗結核剤の投与は行わなかった。当科および内科にて経過観察中であり，術後 1 年 6 ヶ月経過した現在再発は認めていない。

症例 2：76 歳，女性。

図3 症例1 摘出標本の断面
黄色充実性粥状であった。

主訴：左耳前部腫瘍。

既往歴・家族歴：特記事項なし，結核なし。

現病歴：2000年9月下旬に左耳前部の腫瘍に気づき，その後急速に増大したため，10月10日当科外来を初診した。

初診時所見：左耳前部に25×20mm大，弾性硬の腫瘍を触知し，顔面神経麻痺は認めなかったが，腫瘍は皮下と強く癒着し皮膚に発赤を伴い，圧痛を訴えていた。以上の所見より耳下腺悪性腫瘍を疑い，11月23日入院となった。

CT所見：造影CTでは耳下腺部に，周囲がリング状に不規則に造影され，中心部は低吸収域な腫瘍陰影を認め

た（図5）。

MRI所見：T1強調画像において内部不均一な腫瘍陰影を認めた（図6）。術前検査中も腫瘍は増大傾向にあり，悪性腫瘍の疑いのもと2000年11月24日手術を施行した。腫瘍は耳下腺浅葉に存在し，腫瘍表面皮膚，周囲正常耳下腺組織とともに摘出し，術中迅速病理検査に提出すると炎症性変化のみで悪性所見は認められなかった。顔面神経とは軽度の癒着を認めたが剥離可能であり，悪性所見がないことから神経は温存し手術を終了した。摘出した腫瘍内部は黄色充実性の部分と，嚢胞化し茶褐色の内容物が存在する壊死性の部位が認められた（図7）。

病理組織所見：中心部の乾酪壊死とその周囲に炎症細胞浸潤がみられ（図8a），強拡大像ではランゲハンス巨細胞，類上皮細胞，リンパ球浸潤を認めた（図8b）。また，組織のZiehl-Neelsen染色にて結核菌が証明され（図8c矢印），耳下腺結核と診断された。

術後経過：ツベルクリン反応は陰性で，赤沈は1時間値24mm，2時間値53mmと亢進していたが，喀痰培養・塗抹検査，PCR法とも陰性で，肺CTでも結核を示唆する病変は認められなかった。治療は当院内科において，術後6日目からINH 400mg，RFP 450mgの投与を開始し，現在も内服加療を続けており，内科および当科外来にて経過観察中である。

考 察

頭頸部領域の結核症では，頸部リンパ節結核が最も多

a

b

図4 症例1 病理組織所見（HE染色，a：×100，b：×400）

a：ワルチン腫瘍の部位で高円柱上皮細胞の乳頭状發育を認め，間質にリンパ球の増殖を認める。

b：同一腫瘍内に認められた結核性病変部位で，乾酪様壊死を伴う肉芽腫周辺に類上皮細胞，ランゲハンス巨細胞と著明なリンパ球浸潤を認める。

図5 症例2 造影CT画像

耳下腺部に、周囲がリング状に不規則に造影される中心部が低吸収域な腫瘍陰影を認める。

図6 症例2 MRI T1強調画像

内部不均一な腫瘍陰影を認める。

く、唾液腺結核はまれである。唾液腺結核としては耳下腺が最も多く、次いで顎下腺、舌下腺の順とされており²⁾、耳下腺結核は1925年に秋谷³⁾が本邦で最初に報告している。感染経路としては頸部リンパ節結核と同様に主にリンパ行性と考えられており、鼻・咽頭粘膜より侵入した菌体がマクロファージに貪食され、それがリンパ流にのり下行性に頸部に進展するという説、気管支・肺胞粘膜より侵入した菌体がマクロファージによりリンパ流を上

行し頸部へ運ばれ進展するという説の2経路が考えられているが⁴⁾、今回われわれが経験した症例はいずれも肺結核の既往はなく、諸家の報告^{5)~7)}にもあるように前者の説が有力と考えられる。まず耳下腺内リンパ節に侵入し、腺内のリンパ節炎を生じ、その後耳下腺実質に波及するとされており、頭頸部領域で最も多い頸部リンパ節結核の延長線上にあると考えられている。臨床症状もリンパ節結核と同様で腫瘍の急速な増大、局所の疼痛・

図7 症例2 摘出標本の断面

黄色充実性の部分と囊胞化し茶褐色の内容物が存在する壊死性の部位が認められた。

圧痛、皮膚表面の発赤や瘻孔形成、なかには顔面神経麻痺をきたしたという報告もあり⁸⁾、術前に悪性腫瘍との

鑑別が困難な場合が多い。

症例1のように耳下腺結核にワルチン腫瘍を合併した報告はきわめてまれであり、本邦においては馬場ら⁹⁾が報告して以来、われわれが検索し得た限りでは本例が4例目である。本症例1では馬場ら⁹⁾、山崎ら¹⁰⁾と同様にワルチン腫瘍の部分と結核病変部が孤立に存在していたが、鈴木ら¹¹⁾はワルチン腫瘍内に限局した耳下腺結核を報告している。自験例では馬場ら⁹⁾、鈴木ら¹¹⁾と同じく菌体を証明することはできなかったが、頭頸部結核では結核菌が証明される症例は少なく、ほとんどの症例が術後病理組織検査で診断されており、耳下腺結核も報告例の多くが術後の病理組織学的検査において乾酪様壊死を伴う肉芽腫周辺の類上皮細胞とラングハンス巨細胞を認めるという特徴的な所見により診断されていることから本例も耳下腺結核と診断した。また、本症例での感染経路については明確にし得ないが、既往歴や家族歴に結核はなく、ワルチン腫瘍の組織学的特徴はリンパ濾胞を有

a

b

c

図8 症例2 病理組織所見 (a, b: HE 染色, c: Ziehl-Neelsen 染色)

a: 中心部の乾酪壊死とその周囲の炎症細胞浸潤を認める (×100)。

b: ラングハンス巨細胞, 類上皮細胞, リンパ球浸潤を認める (×200)。

c: 矢印部に結核菌を認める (×2000)。

するリンパ組織が間質となっていることから, 前述したように鼻・咽頭粘膜より侵入した菌体がマクロファージに貪食され, それがリンパ流にのり下行性に耳下腺ワルチン腫瘍内に進展した可能性が推測される。

一般に耳下腺結核の診断は, 既往歴や家族歴で結核がある場合はかなり重要な手がかりと考えられ, ツベルクリン反応が強陽性であれば結核を強く疑うことができるが, 陰性であるからといって結核を否定することはできない。画像診断では症例 2 のように, CT で腫瘍の辺縁に造影効果があり中心部に低吸収域を認める所見が結核性病変に特徴的とする報告もあるが¹²⁾, 悪性腫瘍においても同様の所見を呈する場合もあり, われわれも術前に悪性腫瘍を疑い手術を行った。その他 MRI, 超音波検査でも結核に特異的な所見はなかった。

FNA は頸部リンパ節結核において, 補助的診断の一つにすぎず, 最終的には外科的手段による病理組織学的検査で類上皮細胞よりなる肉芽腫の形成, 乾酪壊死, ラングハンス巨細胞など特異的な組織学的所見により診断を確定する必要があるとされている¹³⁾ が, 一方では FNA により得られた内容物での Ziehl-Neelsen 染色で菌体が証明できたという報告¹⁴⁾ もあり, 症例 2 では組織での Ziehl-Neelsen 染色で結核菌が証明された。

FNA に関しては, 当院では耳下腺の腫瘍性疾患に対しては, 多形腺腫であった場合の細胞播種を考慮し基本的には行っておらず, 今回の 2 症例に対しても行わなかったが, 術前の鑑別診断法として有用と考え, 今後手術的治療を前提とする症例では FNA を術前診断法の一つとして見直す方向である。

最近では PCR 法による結核菌 DNA の同定も行われており, 結核を迅速に診断できる有力な検査法であるが, 偽陽性や偽陰性の症例があるので, 感染力や薬剤感受性の評価ができないという欠点もあり¹⁴⁾ 塗沫検査, 培養検査が必要となる。

治療においては術前診断が困難ということもあり報告例のほとんどで耳下腺の外科的切除が行われているが, 一方では耳下腺腫瘍の外科的摘出は必ずしも必要でなく, 抗結核剤の投与のみで十分な症例もあるとされており¹⁵⁾, FNA や PCR で術前診断が可能な場合や, 既往歴, 家族歴, ツベルクリン反応などで結核が強く疑われれば外科的侵襲を回避した治療が行い得ると考えられる。当院においては薬剤治療は内科医に依存しているのが現状であり, 肺外結核では肺結核のように標準化されたもの

はなく, 肺結核の短期化学療法に準じ, 非排菌例では INH と RFP の 2 剤併用を主軸として 6 ヶ月間から 1 年間治療を継続することが一般的である⁴⁾。

結核が再興感染症として注目されている現在, 今後の日常臨床においてわれわれ耳鼻咽喉科医が頭頸部領域の結核症に遭遇し得る機会が増加することが予測される。近年日本では在日外国人の結核, 結核集団感染事例の増加, 結核患者の高齢化などが問題となっている。また医療側の結核に対する認識不足もあるため, 頭頸部領域においても早期診断により外科的治療が回避できる可能性があること, 結核集団感染防止のためにも常時結核症を念頭に置きつつ日常臨床に携わる必要があると考えられる。

ま と め

- 1) 耳下腺結核の 2 症例を経験した。
- 2) 1 例はワルチン腫瘍と耳下腺結核症が合併したきわめてまれな症例と考えられた。
- 3) 近年結核は再興感染症として注目されており頭頸部領域においても常に念頭に置き, 日常臨床に携わることが重要と考えられた。

本論文の要旨は平成 13 年度日本耳鼻咽喉科学会三重県地方部会学術講演会にて口演した。

参考文献

- 1) 厚生省保険医局結核感染症課監修: 結核の統計 1998. 33 頁, 結核予防会, 東京, 1998.
- 2) 桜井 栄, 黄田正宗, 小堀 正, 他: 耳下腺結核の 1 症例 一本邦報告例の文献的考察一. 耳喉 56 : 417 ~ 423, 1984.
- 3) 秋谷良男: 耳下腺結核の 2 例. 日外会誌 26 : 68 ~ 69, 1925.
- 4) 田村嘉孝, 高嶋哲也, 露口泉夫: 頸部リンパ節結核. JIM 9 : 611 ~ 613, 1999.
- 5) 川浪 貢, 古田 康, 飯塚桂司: 最近経験した結核症 4 例. 耳鼻臨床 82 : 977 ~ 982, 1989.
- 6) 峯田周幸, 芹沢泰博, 藤川和成, 他: 耳鼻咽喉科領域の結核症. 耳喉 56 : 631 ~ 637, 1984.
- 7) 平出文久: 最近の耳鼻咽喉科領域の結核症. 耳喉 49 : 973 ~ 984, 1977.
- 8) 坂本 守, 荒木伸彦, 小川 明, 他: 顔面神経麻痺を伴った耳下腺結核例. 耳鼻臨床 84 : 959 ~ 962, 1991.
- 9) 馬場駿吉, 大橋道三, 島海 純: 結核病変を伴った耳下腺 papillary cystadenoma lymphomatousum の 1 例. 日耳鼻 72 : 2247, 1969.
- 10) 山崎たくみ, 吉原俊雄: 結核を合併した耳下腺 adenolympho-

- ma の 1 例. 口咽科 7 : 301 ~ 306, 1995.
- 11) 鈴木政美, 奥 常幸 : ワルチン腫瘍内に結核感染を認めた 1 症例. 耳喉頭頸 66 : 716 ~ 718, 1994.
- 12) 児玉 章, 黒田令子, 石井哲夫 : 耳下腺結核の 1 症例—画像診断所見を中心に—. JOHNS 4 : 1647 ~ 1653, 1998.
- 13) 武林 悟, 児玉 章, 野末道彦, 他 : 頭頸部領域の結核症. 耳鼻臨床 86 : 1457 ~ 1466, 1993.
- 14) 山本一宏 : 頸部多発性結核性膿瘍例. 耳鼻臨床 94 : 77 ~ 81, 2001.
- 15) 吉村浩太郎, 土田幸英, 朴 明郁, 他 : 耳下腺結核の 1 例. 日形会誌 11 : 573 ~ 579, 1991.

原稿受付 : 平成13年 7 月 2 日
原稿採択 : 平成13年 9 月19日
別刷請求先 : 野々山勉
〒515-8557 松阪市朝日町1区15-6
済生会松阪総合病院耳鼻咽喉科