オトガイ部に認められた Manson 孤虫症の 1 例

宮木 克明・藤田 茂之・上谷 和人
西田 光男・吉武 一貞*

Sparganosis Mansonii of the mental region: Report of a case

Katsuaki MIYAKI・Shigeyuki FUJITA・Kazuhito KAMITANI
Mituo NISHIDA・Kazusada YOSHITAKE*

Abstract: We have recently experienced a case of lower-face Sparganosis Mansonii.

Sparganosis was first described in 1832 by Manson who found the infection in a sailor from Amoy, China.

The most common presentation of Sparganosis is that of a subcutaneous mass or nodule which may be tender. Locations such as the abdominal wall, chest wall, neck and eyelid have been reported in the literature.

A 36-year-old woman visited our hospital with a complaint of painless swelling of the mental region.

Resection of the tumor was performed under general anesthesia. Histopathological finding of the tumor was obtained by a positive skin test using the antigen which was extracted from *Diphilothrix Bothrium Mansonii*.

Key words: Sparganosis Mansonii

緒 言 症 例

マンソン孤虫症はイヌ、ネコの腸内に寄生するマンソン裂頭条虫の発育中間体が人体に侵入するもので日本ではいまままでに 200 例を超える報告があるが、口腔外科領域の報告例は、数例にすぎない^{1,2)}。著者らはオトガイ部の無痛性腫瘍を主訴として受診した 1 例を経験したので、その詳細を報告する。

患 者：36歳 女性 愛媛県宇和島市在住。
初 診：昭和59年 1 月■日。
主 訴：オトガイ部の無痛性腫瘍。
既往歴：30歳の時、甲状腺肥大と診断され加療を受けている。

家族歴：特記事項なし。

職業歴：■

現病歴：昭和58年の夏期に全身倦怠感を訴え食欲不振にて体重 10 kg の減少があった。これとほぼ同時期になんらの局所的誘因なく、発赤疼痛を伴わない小指頭大の腫瘍をオトガイ部に認めた。同年12月頃より同部腫瘍の増大、発赤を自覚するとともに全身倦怠感も増悪したので本年 1 月■日当科を受診した。

現 症

全身所見：全身倦怠感を訴える。

局所所見：(口腔外所見) オトガイ部の腫瘍は、比較的境界明瞭で大きさ 3 cm と 1.5 cm 径の類円形、表面

京都大学医学部口腔外科学教室

(主任：小野 尊隆教授)

* 滋賀医科大学付属病院歯科口腔外科

(主任：佐藤 匠教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Faculty of Medicine, Kyoto University (Chief:
Prof. Takatoki Ono)

* Department of Oral and Maxillofacial Surgery
Shiga Univ. Hospital, Shiga University of
Medical Science (Chief. Prof. Takumi Sato)

受付日：昭和59年11月14日

写真1 オトガイ部腫瘍

写真2 超音波断層撮影像 (矢印は腫瘍)
右: 広頸筋緊張時 左: 広頸筋弛緩時

表1 初診時の臨床検査所見

1) 血液一般検査		梅毒	(-)
WBC	$60 \times 10^3 / \mu l$	HBs-Ag	(-)
RBC	$375 \times 10^4 / \mu l$	HBs-Ab	(-)
Hb	12.6 g/dl	4) 血液生化学検査	
Ht	38%	Na	143 mEq/l
PLT	$21.2 \times 10^4 / \mu l$	K	4.4 mEq/l
白血球百分率		Cl	106 mEq/l
Stab	7%	T.B.	0.3 mg/dl
II	20%	D.B.	0.1 mg/dl
III	28%	GOT	16 u/l
IV	8%	GPT	6 u/l
Eosino	1%	Che	0.83 ΔpH
Lympho	32%	LDH	291 u/l
Mono	4%	ALP	8.2 KA
BSR	30' 8 mm	γ-GTP	28 u/l
	60' 20 mm	BUN	12 mg/dl
	120' 42 mm	Cr	0.8 mg/dl
2) 尿検査		Tch	188 mg/dl
糖	(-)	蛋白分画	
蛋白	(-)	T.P.	8.2 g/dl
ウロビリノーゲン	(±)	A/G	1.65
潜血反応	(-)	Alb	62.3%
pH	6	α ₁ -G	3.6%
アセトン	(-)	α ₂ -G	8.3%
比重	1.022	β-G	8.2%
3) 血清検査		γ-G	17.3%
CRP	(-)

写真3 Bone scintigraphy 所見

平滑で一部皮膚面に自潰を伴い、血行に富み、発赤を呈する。

オトガイ下部にはオトガイ下リンパ節が、1個のみ小指頭大に腫脹し、オトガイ部腫瘍は軽度の圧痛と熱感を

示し、辺縁部では弾性硬、中心部ではやや軟性を呈する(写真1)。

口腔内所見: 歯槽部および下口唇部を含め口腔粘膜に特別の異常を認めない。歯牙は腫瘍の近接領域である下顎左右犬歯切歯とも軽度の辺縁性歯肉炎があるのみで、齦蝕はなく各歯牙とも歯髄電気診断による反応は陽性で

あった。

臨床検査所見

血液検査所見：表1に示すごとく異常所見は認められなかった。

糞便検査所見：潜血反応は陰性で、塗抹法、集卵法にても寄生虫卵等は発見できなかった。

超音波断層撮影所見：オトガイ部腫瘤中央部では、Low density を示し、辺縁部では High density を呈し、周囲組織との境界明瞭で、広頸筋相当部までの浸潤は認められなかった（写真2）。

Scintigraphy 所見：Tc MPD Bone Scintigraphy では、異常を認めなかったが、Gallium 67 Scintigraphy においてオトガイ部腫瘤に一致する強い集積を認めた（写真3、4）。

X線所見：パノラマ写真、胸部正面写真、頭部後頭前頭位写真において異常を認めなかった。

ツベルクリン反応：7×8 mm 疑陽性であった。

臨床診断

臨床経過、血液検査所見、ツベルクリン反応などより

特殊性炎症を否定できないが、オトガイ部良性腫瘍をまず考えた。

臨床診断：オトガイ部良性腫瘍。

処置方針および経過：オトガイ部腫瘤の自潰部より採取した膿の培養検査の結果からは細菌等の検出はできず、喀痰検査を連続10日間施行し8週間培養後でもGAFFKY 号数0であったので、オトガイ部良性腫瘍と考え昭和59年2月■日全身麻酔下にて腫瘍摘出術を施行した。

手術所見：オトガイ部に腫瘤より約5 mm 離して周囲組織を含めた紡錘状の皮膚切開を加え、広頸筋上の皮下組織を含めて腫瘤を一塊として切除した。なお、広頸筋への癒着は認められなかった。

摘出物所見：腫瘍は上皮、真皮さらには皮下組織に及ぶ約3×2×1 cm、1.5×1×1 cm 大の連続した2個の塊からなっていた。断面は暗褐色の肉芽様充実性の組織を中心に含み、その一部から皮膚面へ達する融解部分と潰瘍形成部分を認め、辺縁部は比較的硬いゴム状を呈していた（写真5）。

病理組織所見：皮下直下に好中球、好酸球、リンパ球などからなる細胞浸潤および出血を伴う肉芽腫が存在

写真4 Gallium scintigraphy 所見

写真5 摘出物

写真6 病理組織像（H-E染色，×400）

し、その一部には有機物の壊死像を中心に多数の小円形細胞、好酸球の強い浸潤が認められたが、いわゆるラングハンス異物巨細胞は認められなかった。以上の所見より寄生虫に起因する可能性の高い肉芽腫性炎症が示唆された(写真6)。

術後経過と処置：病理所見を基に市立宇和島病院皮膚科と相談の結果、マンソン裂頭条虫による同様の皮膚科病変が同地区に発生していたことから、マンソン孤虫症の疑いが最も強いと考えられた。そこで他の患者から摘出してあったマンソン孤虫の虫体から生理的食塩水で抽出し凍結乾燥して得た抗原粉末 20 mg を 0.2 ml の蒸留水に溶解した液 0.1 ml を患者の前腕部に皮下注射し、約15分後に 6×4 cm の発赤を認めた。著者らは、対照として自己に皮内反応を施行したが、12時間経過しても、1×1 cm 以内を示すにすぎなかった。

以上により腫瘍をマンソン孤虫症と診断した。

術後、全身的駆虫療法は施行しなかったが、8か月経過した現在、全身状態、局所状態とも良好である。

考 察

マンソン孤虫症 (Sparganosis mansonii) は 1882 年 Manson が中国人の屍体皮下から 2 条の乳白色帯状の虫体を採取し、これを Cobbold に送り、翌年 *Lingula mansonii* として記載報告したのが最初である³⁾。

日本における報告は京都府立医大の前身である京都府立病院の院長 Scheube が、Manson の発見より 1 年早い 1881 年に九州出身 28 歳元馬丁で囚人の尿道から摘出したのが人体内発見の最初といわれているが、Cobbold の報告が 1 年早かったために、*Lingula Mansonii* と一般に呼ばれるようになったり。

この幼虫が人体寄生を起こすと、成虫にならず体幹の皮下組織、筋肉、脂肪組織に宿るといわれている。顎口腔領域では、1898 年、尾見が顎下腹筋前腹部から Manson 裂頭条虫の虫体を摘出しルーペによる観察図を添えて報告しているのが最初である⁵⁾。近年では、吉武らが口腔前庭から犬歯窩部軟組織中の Manson 裂頭条虫を摘出した本学会報告例がある¹⁾。

マンソン孤虫の生活環は図 1 に示すように終末宿主のイヌ、ネコなどの糞便内の虫卵が淡水で Coracidium となり、第一中間宿主であるケミジンコに食われて Proceroid となる。これを第二中間宿主であるヘビ、ニトリなどが水とともに飲むと Plerocercoid となる。終末宿主のイヌ、ネコなどにこれらが食べられると腸管内に住みつき成虫となる⁶⁻¹⁰⁾。一方人間など不適当な宿主に摂取された Plerocercoid は、消化管壁を貫通し、組織中を移動しマンソン孤虫症を発症させる¹¹⁻¹³⁾。

マンソン孤虫症の臨床症状は、皮下における無痛性腫瘍形成が主で、腫瘍は握雪感を伴うとともに日により

図 1 マンソン孤虫の生活環

わずかに移動する場合の他、一般に無症状で経過することが多いとされ¹⁴⁻¹⁶⁾、急性症状を呈する場合は発赤、赤沈亢進、CRP 陽性、などの所見を伴うことが多いとされている¹⁷⁻²⁰⁾。しかし、数か月の経過で血液所見の改善がみられるといわれ決定的なものでなく、ほとんどの報告例で血液所見に異常を示していない^{21,22)}。また免疫血清学的診断法として補体結合反応、免疫電気泳動法、沈降反応、蛍光抗体法も参考になるという報告も散見される²³⁻²⁷⁾。以上いずれにしても決定的な臨床症状、検査所見がなく、しかも予期しがたい病因によるので最終的な診断は摘出後の病理診断によることが多く術前に診断し得た臨床報告は、著者らが卵捕した内ではなく、過去の報告においてもアテローム、良性腫瘍として手術を施行している例が多い^{8,9,28)}。自験例でも臨床経過、ツベルクリン反応などにより結核性リンパ節炎または良性腫瘍を疑ったが、頤部腫瘍の自潰部より採取した膿の細菌検査結果、喀痰検査結果、病理組織像などからこれらは否定され、最終的には虫体抽出抗原による *in vivo* 免疫反応により診断をくだした。

マンソン孤虫症の生活環から本症における感染経路を考察すると、ヘビ、カエル、野鶏などの中間宿主動物の生食による感染は、問診により否定され、患者は長年ペットとしてイヌを飼育し就寝をともししており、糞便の処理も患者が行っていた事実から、生活環境での直接あるいはなんらかの中間宿主を介してのイヌからの感染と推察された。

治療法は現在のところ虫体摘出以外は適当な方法がないとされ、摘出後の予後は良好とされている。

結 語

著者らは、36歳女性のオトガイ部に単発的に発症し、免疫学的にマンソン孤虫症と診断した 1 例を経験したので、若干の文献の考察を加えて報告した。

稿を終えるにあたりご指導、ご校閲を賜った京都大学医学部口腔外科学教室小野尊陸教授に深謝いたします。またご教示いただいた市立宇和島病院病院長近藤俊文、

同皮膚科岩尾英一，愛媛県立中央病院病理田尾茂の諸先生に謝意を表します。

引用文献

- 1) 吉武一貞，佐藤 匠，他：頬部腫瘤からマンソン裂頭条虫（仔虫）を発見した興味ある一例（抄），日口外誌 16: 241-242 1970.
- 2) 山田正泰：顎下部リグラ条虫一実験，京都医学会雑誌 14: 16-18 1899.
- 3) Cobbol, T.S.: Description of *Lingula Mansoni*, a new human cestode. The Journal of the Linnean Society 17: 78-83 1884.
- 4) 岩田正俊，松田鎮雄，他：マンソン裂頭条虫の成虫の人体寄生例，広島医学 21: 152-158 1968.
- 5) 尾見 薫：Lingula Mansoni に就ての実験，京都医学会雑誌 128: 1-13 1898.
- 6) 岡田 要，他：原色動物大図鑑，第一版，北隆館，東京，1960，23-28.
- 7) 高橋剛男，於田和光：マンソン裂頭条虫 *Diphylobothrium mansoni* Joyeux 1928 に関する研究，昭和医会誌 16: 528 1957.
- 8) Leuckart, R: Beobachtungen und Reflexionen über die Naturgeschichte der Blasenwürmer (*Cysticercus*, *Echinococcus*) Archiv für Naturgeschichte 14: 7-25 1848.
- 9) Leuckart, R: Schreibung zweier neuen Helminthen. Archiv für Naturgeschichte 14: 26-29 1848.
- 10) 岩田正俊：日本裂頭条虫科目の再検討，寄生虫学会雑誌 14: 616-618 1965.
- 11) Norman, S.H. and Kreutner, A.J.: Sparganosis, clinical and pathological observations in Ten cases. Southern Medical Journal 73: 297-300 1980.
- 12) 森下哲夫，加納六郎：新寄生虫病学，第5版，南山堂，東京，1968，152-153.
- 13) 小林英一：Manson 氏裂頭条虫の発育に関する研究（第3. Proceroid の第二中間宿主及人体への感染経路に関する実験的研究），台湾医学会雑誌 30: 16-38 1931.
- 14) 福地利門：マンソン裂頭条虫症の一例，米子医学 17: 177-181 1966.
- 15) Sanson, J.G. and Bode, M.J.: Human Sparganosis, report of a case in Wisconsin. Wisconsin Medical Journal 71: 164-165 1972.
- 16) 田中 寛，山科正平，他：眼孤虫症の2例特に分岐した孤虫について，寄生虫学会雑誌 16: 319-323 1967.
- 17) 大河内一雄，山田栄八朗，他：蛇を生食することによっておこされたマンソン裂頭条虫症について，日本臨床 18: 2024-2030 1960.
- 18) 平田泰一：特異なX線像を呈したマンソン孤虫症の一例，整形外科 17: 479-483 1966.
- 19) 市川達男：急性乳嘴突起炎経過中ニ偶然発見セル『リグラ』条虫寄生ノ症例，耳鼻咽喉科 4: 770-778 1931.
- 20) 吉田文雄：リグラ状幼裂頭条虫ニ由ル咽後膿瘍ノ一例，長崎医学 19: 2249-2253 1938.
- 21) 菊池一郎，梅木昇次：マンソン幼裂頭条虫症の一例，皮膚と泌尿 27: 748-750 1965.
- 22) 勝田仁康，猪飼和夫，他：乳腺腫瘤を形成したマンソン孤虫症の2例，和歌山医学 33: 105-110 1982.
- 23) 岡部浩洋，松瀬幹也，他：マンソン孤虫症の免疫学的研究，久留米医学会誌 20: 907-913 1957.
- 24) 石井 明：マンソン孤虫症の間接蛍光抗体法による診断，寄生虫学会雑誌 22: 75-78 1973.
- 25) 辻 守康：寄生蠕虫類の免疫電気泳動法について，寄生虫学会雑誌 23: 335-345 1974.
- 26) 辻 守康：数種寄生蠕虫類の感作血清による免疫電気泳動像の比較研究，寄生虫学会雑誌 24: 227-236 1975.
- 27) 古本福市，西廻和春，他：免疫学的にも診断できたマンソン孤虫症の1例，外科診療 21: 1144-1147 1979.
- 28) 峯浦一喜，森 照明，他：脳マンソン孤虫症，脳神経外科 9: 175-178 1981.