右側顎下部に腫脹をきたしたネコひっかき病の1例

中 出 修・賀 来 亨・大内知之・小 川 純
阿 部 英二・菅 野 秀 俊・高 橋 香 苗・奥 山 富 三

A case of cat scratch disease appeared with the swelling at the submandibular region

Osamu NAKADE・Tohru KAKU・Tomoyuki OHUCHI・Atsushi OGAWA
Hideji ABE・Hidetoshi KANNO・Kanae TAKAHASHI・Tomizo OKUYAMA

Abstract: We present a case of cat scratch disease. The patient was a 72-year-old male. He received a scratch from his cat at the right submandibular region.

About three days later, he noticed several eruptions at the same site and then a painless tumor mass began to develop. The sialogram of the right submandibular gland showed no abnormality. The mass was surgically removed.

Histopathologically, there were focal granulomatous lesions with suppuration and necrosis in the submandibular lymph node. The necrosis was surrounded by a layer of epithelioid cells. The lesion involved the adjacent tissues, that is, the adipose tissue, the muscle tissue and the salivary gland. Microbiologically, acid-fast bacilli or other organisms were not seen by Ziehl-Neelsen, PAS, Brown-Hopps' and Warthin-Starry stains.

The diagnosis of cat scratch disease was made on the basis on the clinical and histopathological features.

Key words: cat scratch disease (ネコひっかき病), lymphadenitis (リンパ腺炎), Warthin-Starry stain (Warthin-Starry 染色)

緒 言 症 例

ネコひっかき病 (Cat scratch disease, CDS) はネコから人に伝播される疾患で、感染ネコにひっかかれたか、あるいは咬傷を受けた後に、その部位に丘疹などの初発病変を生じ、ついで所属リンパ節の腫脹を来すのを特徴とする。

今回われわれは72歳、男性の右側顎下部に腫脹をきたしたネコひっかき病の1例を経験したので、その概要を報告する。

患 者: 72歳 男性。

主 訴: 右側顎下部の腫脹。

既往歴: 特記事項なし。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 昭和62年9月■頃、入眠前、飼いネコに右側顎下部の皮膚を約3cm ひっかかれ、その約3日後、同部に昆虫刺傷時に似た発疹が出現したという。また、さらに5日後より同部が腫脹し始めたが、とくに発熱、疼痛などの症状がなかったため、放置した。しかし、その後も腫脹が軽減しないため、同年10月■、某町立病院外科を受診し、入院となった。

現 症

全身所見: 体格中等度、栄養状態良好、体温 36.5°C、一般状態良好。

局所所見: 右側顎下部に約 5×4 cm、弾性硬で、周囲組織との癒着がみられる腫瘍1個を触知。同部の皮膚は

東日本学園大学歯学部口腔病理学教室

(主任: 奥山富三教授)

Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Higashi-Nippon-Gakuen University (Chief: Prof. Tomizo Okuyama)

受付日: 平成元年7月24日

わずかに発赤し、軽度の圧痛が認められたが、自発痛はなかった。同側の頸部リンパ節、左側の顎下リンパ節および左側の頸部リンパ節など触知しなかった。

顎下腺造影所見：顎下腺には、特に異常所見はなく、腫瘤と顎下腺とに明瞭な関係は認められなかった（写真1）。

血液生化学的検査所見：白血球数 $6,500/\text{mm}^3$ で、その他特に異常所見は認められなかった。

臨床診断：ネコひっかき病の疑い。

処置および経過：同年10月■，確定診断のため、G.O.F. 全身麻酔下にて、右側顎下部腫瘤を摘出した。

写真1 顎下腺造影写真

腫瘍と顎下腺（▲）との間に明瞭な関係は認められない

腫瘤は顎下腺を含み一塊となっていた。摘出物断面は黄白色で、膿の排出を認めた。

術後、4日間、ペニシリン系抗生剤、アンピシリン $1,000 \text{ mg/day}$ を経口的に投与した。経過良好で、同年10月30日退院した。

病理組織学的所見：摘出物中にはリンパ節、その周囲の脂肪組織、筋組織および顎下腺が含まれていた（写真2）。リンパ節内部には島状および岬状の不規則な壊死組織が認められた（写真3）。この壊死巣は乾酪巣に類似するもヘマトキシリンに青染し、核破片も多く、好中球が多数認められた。壊死巣のすぐ外側には類上皮細胞が柵状に配列し、その外層にはリンパ球、形質細胞を主体とした炎症細胞浸潤の認められる特徴のある肉芽腫を形成している（写真4）。これらの炎症はリンパ節周囲の脂肪組織、筋組織（写真5）顎下腺（写真6）におよ

写真3 病理組織写真

島状（△）および岬状（▲）の壊死組織（H-E, ×17）

写真2 病理組織写真，全体像

A：リンパ節，B：顎下腺，C：リンパ節外の筋組織および脂肪組織（H-E, ×4）

写真4 病理組織写真，（写真3の拡大）

壊死組織（*）に接し，類上皮細胞（↑）が柵状に取り囲んでいる（H-E, ×170）

写真5 病理組織写真, リンパ節外の筋組織
炎症はリンパ節外においても強く, 周囲の筋組織に
及んでいる (H-E, ×170)

写真6 病理組織写真, 顎下腺組織
顎下腺にはリンパ球, 形質細胞を主体とした炎症細
胞の浸潤があり, 腺房の萎縮, 消失が認められる
(H-E, ×34)

び, 顎下腺においては腺房の萎縮消失がみられた。

なお原因菌同定のため, Ziehl-Neelsen の抗酸菌染色 (結核菌), Brown-Hopps のグラム染色 (一般細菌), PAS 染色 (真菌) および Warthin-Starry 銀染色 (スピロヘータなど) を行ったが, いずれにおいても細菌, 微生物は検出されなかった。

病理組織診断: ネコひっかき病。

術後経過: 術後, 約1年8か月経過した現在においても再発はなく, 経過良好である。

考 察

ネコひっかき病 (cat scratch disease, 以下 CDS) は普通ネコから人に伝播される人獣共通伝染病であり, ネ

コとの接触, 受傷後, 受傷部位の皮膚病変や所属リンパ節の腫脹を特徴とする¹⁻¹¹⁾。

本症は世界に広く分布し, あらゆる民族に発症し, 男性にやや多い^{13,14)}といわれている。また, 季節的には夏から冬にかけて発症することが多い¹³⁻¹⁵⁾とされるがこの意味づけについては不明である。

好発年齢については, Carithers ら¹⁴⁾は CDS と診断された 1,200 人の患者について調査したところあらゆる年代に発症するが18歳以下の若年者層に多く, 全体の87%を占めていたと報告している。

CDS の典型的な臨床経過¹²⁻¹⁴⁾はネコから咬傷, あるいは搔傷などの損傷を受け, 数日後に損傷部位に丘疹あるいは昆虫刺傷時に似た水疱などの初発病変を生じ, 3~50日の潜伏期の後, 初発病変の所属リンパ節の腫脹を来すと報告されている。罹患リンパ節の部位別頻度については腋窩, 頸部, 顎下部, 鼠径部の順に多く¹²⁻¹⁴⁾, これは受傷部位の頻度を反映している。

全身症状は比較的軽度のことが多く, 高熱になることはむしろ少ない¹²⁻¹⁵⁾が, 結膜炎^{13,14)}, 脳障害¹⁴⁾, 骨溶解病変²⁰⁾, 肺炎¹⁴⁾, 結節性紅斑¹⁴⁾, 血小板減少性紫斑病¹⁶⁾, 肝炎^{17,19)}, 巨脾症¹⁶⁾などを併発することもあるといわれている。

CDS の病原菌については従来より不明な点が多く, ウイルス説^{22,23)}が主流であったが, 1983年 Wear ら²⁴⁾が臨床的および病理組織学的に CDS の診断基準を満たすリンパ節の標本において Warthin-Starry Silver 染色 (以下 WSS 染色) を試み, その中で高率 (34例/39例) にグラム染色では陰性に染色される多形性の桿菌を認めて以来, 細菌説が有力視されるようになった。また, 1985年 Gerber ら²⁵⁾はネコひっかき病と診断され, 新鮮な生検リンパ節の標本から, WSS 染色とほぼ同一形態の細菌を分離, 培養し, 培養細胞の生化学的, 生理学的また形態学的検索から, この細菌はグラム陽性で, 放線菌の一種であり, ヒト口腔にも常在する *Rothia dentocariosa* であろうといい, CDS の病原菌として注目されている。Gerber ら²⁵⁾は Wear ら²⁴⁾とのグラム染色の結果の違いについて, *Rothia dentocariosa* は培養初期にはグラム陽性の性質を持っているが, 継代培養していくと, グラム染色性が変化し, グラム陰性となることから, この違いは *Rothia dentocariosa* のこのような性質によるものであろうと推察している。

本症の鑑別診断に必要と思われる疾患に野兔病, エルシニア腸間膜リンパ節炎, 鼠径リンパ肉芽腫症, プルセラ症, 結核性リンパ節炎などがあげられる¹¹⁾

Warwick¹⁾ は, CDS の診断基準について,

1. 動物 (通常ネコ) との接触の既往があり, 搔傷または初期に皮膚または眼の病変が認められる。
2. CDS 皮内テスト (Hanger and Rose 法¹⁾) 陽性。
3. 他の原因のリンパ節腫脹病変に対する検査が陰性。

4. 生検したリンパ節の病理組織学的所見が、類上皮細胞性肉芽腫様の像を示し、その中心部には壊死性病変の存在とともに好中球浸潤という特徴的な所見を有する。

以上の4項目のうち3つを満足することが必要であると述べている。しかし最近、特にCDSの皮内テストが一般的に行われていない本邦においてはこれら4項目に加え、WSS染色陽性菌の証明という項が重要視されるようになってきた。しかし、徳永ら²⁶⁾によればCDS型壊死性リンパ節炎を治療過程により、A群：類上皮細胞反応を欠く壊死性病変、B群：類上皮細胞反応を伴う壊死性病変、C群：乾酪化、硝子化、線維化を伴う病変の3群に大別し、WSS染色陽性菌の出現頻度は治療過程が進むにつれて低下する傾向にある（WSS陽性率…A群：88.2%、B群：56.2%、C群：31.8%）と報告し、臨床的、病理組織学的に明らかにCDSと診断された症例においても100%、WSS染色で陽性菌が証明されるとは限らないことを示唆している。

自験例の場合、リンパ節腫脹から切除まで約1か月放置し、病理組織学的には類上皮細胞反応を伴う壊死性病変であるが一部に線維化を伴っていることから、WSS染色で陽性菌の検出はできなかったとしてもならCDSの診断を妨げることはないと考え、1. 顎下部のみの腫脹が認められたこと、2. 飼いネコから搔傷を受け、その後搔傷部位に丘疹が生じたという既往があったこと、3. 他の原因のリンパ節腫脹に対する実験室検査が陰性であったこと、4. また生検したリンパ節の病理組織学的所見が、CDSに特徴的なものであったことから、われわれはネコひっかき病と診断した。

CDSの治療法については従来より、抗生物質は無効とされ、切開、排膿あるいはリンパ節摘出などが行われてきた^{14,15)}。しかし、細菌説が有力になった現在、抗生物質の投与も再検討する必要があると思われる⁹⁾。

結 語

1. 今回、われわれは72歳男性の右側顎下部に発生したネコひっかき病の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え、その概要を報告した。

2. 術後約1年8か月経過した現在、再発もなく、経過良好である。

本論文の要旨は第42回日本口腔科学会総会（昭和63年6月16日 札幌）において発表した。

引 用 文 献

1) Warwick, W.J.: The cat-scratch syndrome, Many diseases or one disease? *Progr Med*

Virol 8: 256-301 1967.
 2) Herman, W.M., and Williams, S.M.: Cat scratch disease. *Otolaryngol Clin North Am* 15: 649-658 1982.
 3) John, R.A. and Andrew, S.L.: Zootic disease of cats. *Vet Clin North Am* 14: 1117-1151 1984.
 4) Chales, M.C.: Cat-scratch adenitis. *Pediatr Infect Dis* 3: 281-282 1984.
 5) Margileth, A.M.: Cat-scratch disease uptake. *Am J Dis Child* 138: 711-713 1984.
 6) 中尾 亨: ネコひっかき病. *日本臨床* 43: 695-697 1985.
 7) Margileth, A.M. and Zawadsky, P.M.: Chronic lymphadenopathy in children and adolescents. *Am Fam Physician* 31: 166-180 1985.
 8) 中尾 亨: 人獣共通感染症, 2. ネコひっかき病. *臨床小児医学* 34: 9-12 1986.
 9) Hainer, B.L.: Cat-scratch disease. *J Fam Pract* 25: 497-503 1987.
 10) Margileth, A.M.: Cat-scratch disease (A therapeutic dilemma). *Vet Clin North Am* 17: 91-103 1987.
 11) Rosai, J.: *Ackerman's Surgical Pathology* Vol. 2. 7th Ed, Mosby Co, St Louis, Toronto, London, 1989, p 1287.
 12) Margileth, A.M.: Cat scratch disease: The study of 145 patients and a review of the literature. *Pediatrics* 42: 803-818 1968.
 13) Miura, T., Torinuki, W., et al.: Cat scratch disease. *Tohoku J Exp Med* 117: 373-380 1975.
 14) Carithers, H.A.: Cat-scratch disease; An overview based on a study of 1,200 patients. *AJDC* 139: 1124-1133 1985.
 15) Spires, T.R. and Smith, R.J.H.: Cat-scratch disease. *Otolaryngol Head Neck Surg* 94: 622-627 1986.
 16) Jim, R.T.S.: Thrombocytopenic purpura in cat scratch disease. *JAMA* 176: 1036-1038 1961.
 17) Recco, V.K., Roman, R.J., et al.: Cat scratch disease; Report of a case with hepatic lesions and a brief review of the literature. *Gastroenterology* 89: 1400-1406 1985.
 18) Katner, H.P., Treen, B., et al.: Pleural effusion and an icteric hepatitis associated with cat-scratch disease; Documentation by cat-scratch bacillus. *Chest* 89: 302-303 1986.
 19) Margileth, A.M. and Wear, D.J.: Systemic cat scratch disease; Report of 23 patients with prolonged or recurrent severe bacterial infection. *J Infect Dis* 155: 390-402 1987.
 20) Muszynski, M.J., Eppes, S., et al.: Granulomatous osteolytic lesion of the skull associated with cat-scratch disease. *Pediatr Infect*

- Dis J 6: 199-201 1987.
- 21) Hindle, J. and Pearce, J.: Cerebellar encephalopathy in cat scratch disease. J Neurol Neurosurg Psychiatry 50: 936 1987.
- 22) Turner, W., Bigley, N.J., et al.: Hemagglutinating virus isolated from cat scratch disease. J Bact 80: 430-435 1960.
- 23) Kalter, S.S., Kim, C.S., et al.: Herpes-like virus particles associated with cat scratch disease. Nature 224: 190 1969.
- 24) Wear, D.J., Margileth, A.M., et al.: Cat scratch disease; A bacterial infection. Science 221: 1403-1405 1983.
- 25) Gerber, M.A., Sedgwick, A.K., et al.: The aetiological agent of cat scratch disease. Lancet 1: 1236-1239 1985.
- 27) 徳永正義, 小山 寿, 他: 壊死性肉芽腫性リンパ節炎における Warthin-Starry 染色陽性桿菌の頻度—ネコひっかき病との関連について—. 病理と臨床 7: 487-491 1989.
-