幼児耳下腺結核症の1症例

華房英樹・細田 超・福田道男・小若純久
畑 毅・藤村和磨・瀬上夏樹*

Tuberculosis of the infant parotid gland: Report of a case

Hideki HANAFUSA・Masaru HOSODA・Michio FUKUDA
Sumihisa KOWAKA・Tsuyoshi HATA・Kazuma FUJIMURA
Natsuki SEGAMI*

Abstract: A 1.4-year-old child presented to our clinic complaining of an infraauricular mass. After admission, we performed CT scan, PPD testing, Ga-scintigraphy and ultrasound. The final diagnosis was based on the histological findings of the surgical specimen and on the PPD test. The treatment was superficial parotidectomy and antibiotic therapy.

Combination therapy with INH, RFP and SM was administered for six months, and no recurrence has been noted to date.

Key words: tuberculosis (結核), parotid gland (耳下腺)

緒 言

近年、化学療法の発達ならびに予防医学の充実に伴い、結核の発生率は減少してきた。しかし昭和61年結核登録者調査によると、いまだに年間発生患者数約5.6万人、要治療者数約12万人、うち感染性患者約3万人と最多の感染性疾患であり¹⁾、したがって今後も頭頸部領域の結核性病変に遭遇する機会も少なくないと考えられる。最近、われわれは1歳4か月男児に発生した耳下腺結核症を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：1歳4か月男児。

川崎医科大学口腔外科学教室

(主任：福田道男教授)

* 京都大学医学部口腔外科学教室

(主任：飯塚忠彦教授)

Department of Oral Surgery Kawasaki Medical School (Chief: Prof. Michio Fukuda)

* Department of Oral and Maxillofacial Surgery Faculty of Medicine, Kyoto University (Chief: Prof. Tadahiko Iizuka)

受付日：平成元年1月11日

初 診：昭和62年1月■日。

主 訴：右側耳介下部腫瘍。

既往歴：胎生40週にて正常出生し特記疾患はなし。

家族歴：家族および近親者に結核あるいは結核既往者はなく、また特記すべき他疾患もない。

現病歴：昭和61年12月■日頃より家族が右側耳介下部の腫瘍に気づき近医受診。細菌性耳下腺炎の診断にて化学療法施行されるも症状の変化がないため当科を紹介受診した。

現 症：全身的に異常は認めなかった。局所的に右側耳介下部に弾性硬の40×30mmの腫瘍を認めたが(写真1)発赤、熱感、皮膚癒着などはなく、また顔面神経麻痺も認めなかった。圧痛や自発痛も訴えなかった。さらに顎下部および頸部のリンパ節の腫大は認めなかった。口腔内所見ではステノン氏管開口部および流出唾液の異常所見は認めなかった。

臨床検査所見：末梢血検査では、白血球数の軽度増多がみられたが、血液化学検査では特に異常はみられなかった。しかし血沈値は1時間値22mmと軽度亢進し、CRP値も2.5mg/dlと上昇、ツベルクリン反応は48時間硬結8×8mm、発赤12×12mmと強陽性を示した(表1)。全身⁶⁷Gaシンチ所見では、腫瘍部に一致して軽度集積を認め、唾液腺シンチでは右側耳下腺腫瘍部に一致した欠損像として描出された(写真2, 3)。CT所見では、周囲が高吸収域で内部に境界が比較的明瞭な低吸収域を認めた(写真4)。超音波断層所見では腫瘍

写真 1 初診時側貌

表 1 術前の臨床検査結果

検査結果	
RBC	$465 \times 10^4/\text{mm}^3$
WBC	$13,900/\text{mm}^3$
Nt. seg	35%
Nt. band	1%
Eos	0%
Bas	0%
Mon	0%
Lym	64%
A. Lym	0%
Platelet	$33.8 \times 10^4/\text{mm}^3$
Ht	32.8%
Hb	10.7 g/dl
ESR	22 mm/h
CRP	2.5 mg/dl
ツ反	$\frac{8 \times 8}{12 \times 12}$ mm

部は高エコーな層におおわれた境界明瞭な低エコー像として認められ嚢胞様病変が示唆された(写真5)。胸部X線所見では、異常陰影は認めなかった。咽頭粘液、胃液、尿、便の結核菌検査ではいずれも陰性であった。

処置および経過：精査加療目的で昭和62年1月■日即日入院した。ツベルクリン反応がBCG未接種にもかかわらず強陽性であったため、小児科対診の上結核症の疑いもあり、小児隔離病棟へ転入した。イソニコチン酸ヒドラジド(INH) 10 mg/kg/day およびリファンピシン

写真 2 ^{67}Ga シンチグラム

^{67}Ga の右耳下腺への集積を認める(▲)

写真 3 $^{99\text{m}}\text{TcO}_4^-$ 唾液腺シンチグラム

右耳下腺部欠損を認める(▲)

写真 4 単純 CT 像

右耳下腺部腫脹部に一致して低吸収域を認める(▲)

(RFP) 10 mg/kg/day の抗結核療法を開始した。10日間の投与にかかわらず腫瘤に著変は認めなかった。前述の諸検査の結果から耳下腺腫瘍または耳下腺結核の疑い

写真 5 超音波断層

写真 7 病理組織像

A

B

写真 6 A: 摘出した耳下腺浅葉と耳下腺内に存在した腫瘍 (▲)

B: 同断面

写真 8 組織中の結核菌体 (↑)
(Acid-fast 染色, 800 倍)

のもと1月■日, 全身麻酔下に右側耳下腺浅葉切除術にしたがって腫瘍を摘出した。腫瘍は耳下腺浅葉内にあり, その周囲には肉芽組織および数個の腫大したリンパ節が存在していた。また腫瘍は顔面神経頰頭枝, 頰筋枝と癒着していたが神経から剝離し摘出した。腫瘍は直径約 10 mm 弾性硬, 内容に淡黄色粘稠な物質と赤褐色ゼリー状物質を入れ比較的厚い線維性被膜により被包されていた (写真 6)。

病理組織学的所見: 摘出した腫瘍の組織像は, 中心部乾酪壊死と周辺類上皮細胞と多核巨細胞の増生からなる結核性リンパ節炎の定型像であった。またリンパ節周囲の唾液腺組織は導管周囲にリンパ球の浸潤が多くみられ慢性の唾液腺炎の像を呈していた (写真 7)。さらに Ziehl-Neelsen 染色にて抗酸菌を認めた (写真 8)。

術後経過: 術直後より, INH, RFP を前述と同様処方, SM を 0.15 g 1 週間 2 回の組み合わせの化学療法を施行し, 術後 3 週間目に軽快退院し, 退院後も外来にて約半年間化学療法施行し, 昭和 63 年末の現在まで再発もなく経過良好である。また術後, 軽度の顔面神経麻痺を認めたが退院時には軽快した。

考 察

唾液腺結核の中では耳下腺の結核がもっとも多いとされており, 顎下腺, 舌下腺の順に頻度が下がってくる²⁻⁴⁾。

耳下腺結核は, 1893 年 De Paoli の報告が最初とされ⁴⁾, 以後本邦においても 1925 年秋谷⁴⁾ の報告から 1988 年竹川ら⁵⁾ の報告までわれわれが渉猟しえた範囲では 53 例が報告されている。

耳下腺結核の発症年齢についてみると桜井ら²⁾ は本邦報告例 47 例を調査し, 最年少は生後 10 か月, 最年長は 82 歳で, 10 歳未満は 6 例 12.8%, 10 歳代は 10 例 21.3%, 20 歳代は 8 例 17.0% であり, 若年者に多い傾向を示し, また 3 歳未満も 5 例 10.6% と幼少期に比較的多くみられたと報告している。一方前田³⁾, 真崎⁶⁾, Stanley ら⁷⁾ は, 中高年にも多くみられるようになったと述べ, 特に真崎ら⁶⁾ は 1930 年代は青年に高い発症率を示していたが, 最近では中高年の女性にも比較的多く発症がみられ, 幅広い年齢層に発生していると述べている。感染源として, 青木⁸⁾ は小児結核患者の 60% に感染源をあきらかにすることができ, そのほとんどが父, 母, 祖父, 祖母の近親者

であり、感染から発病までの期間は大部分が2年以内であったと報告している。これは行動範囲が限られている小児における結核感染の特徴をよく示している。今回の症例においては、近親者に感染源となりうるものはいなかったものの、隣人に結核既往者がおり、周囲環境からの感染が示唆された。

耳下腺結核の感染経路は諸家の報告をみてもリンパ行性感染が大部分であり、まれに上行性、すなわち口腔内より管内性に感染する場合や血行性に感染を起こす場合があるという^{3,6,9)}。耳下腺結核の多くは続発性であり、原発性耳下腺結核の報告は少ないが⁹⁾、秋谷¹⁰⁾によれば原発性耳下腺結核の場合の感染経路としては顔面皮膚、口腔咽頭粘膜からリンパ行性に結核菌が耳下腺リンパ節に及び発症すると報告している。今回の症例の場合も病理組織学的に耳下腺内リンパ節に病巣を形成しており、リンパ行性による感染と考えられた。以上のごとく耳下腺結核は原発性、続発性いずれにせよ耳下腺内リンパ節において結核菌による感染巣が形成された結核性リンパ節炎が本態であり、ときにはこれらのリンパ節が互いに癒合して集塊を形成し、周囲唾液腺組織に著しい非特異性炎を合併し、癒着を生ずることもある。今回の症例においても顔面神経との癒着はこのような病態によるものと考えられた。

診断上必要な検査として行木¹¹⁾は、①ツベルクリン反応 ②赤沈 ③胸部X線撮影 ④耳下腺造影 ⑤CT検査 ⑥エコーグラフィー ⑦シンチグラフィー (^{99m}Tc, ⁶⁷Ga) ⑧結核菌検査(膿瘍, 喀痰, 胃液) ⑨病理組織検査(穿刺吸引細胞診, 摘出物)をあけており、このうち、他覚的には耳下腺結核としての特徴的所見は少ないが、結核症という観点からすれば、ツベルクリン反応の強陽性および赤沈値の亢進などが診断の大きな手がかりとなっている。しかし確定診断は、病理組織学的検査および結核菌検査によらねばならない。

鑑別すべき疾患として、混合腫瘍、癌、悪性リンパ腫、肉腫、サルコイドーシス、Warthin腫瘍、非定型好酸菌症、腺自身あるいは腺内リンパ節の急性または慢性非特異性炎、ウイルス感染症など多くあり、組織検査の結果はじめて確定診断を下している^{9,12)}。本症においても診断に苦慮した。すなわち臨床所見ならびに検査を進めるにしたがい最初は悪性腫瘍が疑われたが、ツベルクリン反応、赤沈などにより結核症も示唆されるようになった。しかし結局手術所見病理検査で確定できた。また非定型好酸菌症は、本邦において報告は少ないものの、この菌の侵入門戸は咽頭、歯肉、歯とされているうえ、また病理組織所見が類似しているため、幼児に一側性の顎下部または顎角部に無痛性のリンパ節腫脹を認めた時は、この疾患も疑い検索を進める必要があるとされている¹³⁾。

治療としては、既述したように診断に難があるため、

表 2 抗結核薬の位置づけ (木野)

A	INH・RFP・SM
B	KM・CPM・EB・TH
C	VM・CS
D	PAS・PZA

潰瘍、瘻孔形成しているものを除けば何らかの手術操作を加え、あわせて SM, PAS, RFP などの抗結核療法を組み合わせる必要があるとされている。抗結核剤については、現在単剤のみで治療することは少なく、2剤以上の併用投与が多いとされ、その抗結核剤の位置づけとして木野¹⁴⁾は表2のような使用序列を発表している。また治療期間としては、症状により異なるが、1年—1年半、ときに2年間は続け、RFPを含む併用では、1年内外でよいとされている¹⁵⁾。また上芝¹⁶⁾らはINH, RFPを軸とした療法で排菌の認められない症例には6か月治療、排菌の認められた症例には、菌陰性化してから6か月(治療期間としてはほぼ9か月)、粟粒結核、骨髄炎については12か月の化学療法を行っているとしている。

結 語

1. 1歳4か月男児の耳下腺結核症を経験したので報告した。
2. 確定診断は病理組織学的にて得られた。
3. 治療は耳下腺浅葉切除と術後6か月間の化学療法を併用した。

稿を終えるにあたりご指導、ご教示を賜った川崎医科大学小児科学教室守田哲朗教授、片岡直樹助教授、岩本さちみ先生に深く感謝致します。また、病理学的所見についてご教示を賜った本学病理学教室廣川満良先生に深く感謝致します。

本論文の要旨は第32回日本口腔外科学会総会(昭和62年、東京)において発表した。

引用文献

- 1) 厚生統計協会：結核。厚生指標—国民衛生の動向— 33: 151-155 1988.
- 2) 桜井 栄, 黄田正宗, 他：耳下腺結核の1例—本邦報告例の文献的考察—。耳喉 56: 417-423 1984.
- 3) 前田 仁, 牧 孝, 他：耳下腺結核の1症例。耳鼻 32: 212-215 1986.
- 4) 秋谷良男：耳下腺結核の2例。日外会誌 26: 68-69 1925.
- 5) 竹川政範, 西村泰一, 他：耳下腺結核の1症

- 例, 日口外誌 34: 2451-2455 1988.
- 6) 真崎正美, 島田和哉, 他: 耳下腺結核の4症例, 耳展 29: 417-422 1986.
- 7) Stanley, R.B., Fernandez, J.A., et al.: Cervicofacial infections presenting as major salivary gland disease. Laryngoscope 93: 1271-1275 1983.
- 8) 青木正和: 結核症の感染と進展—わが国の最近の様相—, 日医師会誌 82: 561-569 1979.
- 9) 杉本嘉朗, 原田康夫, 他: 耳下腺結核の4例, 耳喉 50: 1003-1007 1978.
- 10) 秋谷良男: 耳下腺結核の6例, 日外会誌 36: 39-51 1935.
- 11) 行木英生: 腺内リンパ節腫脹と耳下腺結核, JOHNS 2: 385-389 1986.
- 12) 鈴木 徹, 高橋廣臣: 耳下腺結核症例およびその文献的考察, 耳喉 50: 511-516 1978.
- 13) 村上基千代, 齊藤 肇, 他: 非定型抗酸菌症によるリンパ節炎の1例, 小児診療 38: 1239-1240 1975.
- 14) 木野智慧光: 結核化学療法の実際と新しい考え方, 東京都衛生局結核課 7: 1974.
- 15) 新津泰孝: 小児結核の趨勢および診断と治療, 小児科 21: 1493-1500 1980.
- 16) 上芝幸雄, 田村奈保美: 最近の小児結核の臨床, 小児科 21: 1501-1507 1980.
-