

症例報告

頸部結核性肉芽腫の1例

1) 昭和大学頭頸部腫瘍センター

2) 昭和大学医学部耳鼻咽喉科学講座

3) 昭和大学歯学部口腔外科学講座口腔腫瘍外科学部門

榎橋 幸民*^{1,2,3)} 勝田 秀行^{1,2,3)} 池田賢一郎^{1,2,3)}

江川 峻哉^{1,2,3)} 池谷 洋一²⁾ 齋藤 芳郎^{1,3)}

倉澤 侑也^{1,3)} 木村百合香²⁾ 小林 一女²⁾

嶋根 俊和^{1,2,3)}

抄録：結核は全身のさまざまな臓器に多彩な症状を引き起こす感染症で、結核を疑って精査を進めない限り診断に至ることが難しい疾患である。今回われわれは、非典型的な頸部嚢胞性疾患に対して診断と治療を兼ねて摘出術を施行した結果、病理組織学的診断にて結核性肉芽腫であった症例を経験した。非典型的な病変に対しては結核性病変を鑑別の1つに挙げるのが重要である。頸部の結核性肉芽腫について文献的考察を加え報告する。

キーワード：結核，結核性肉芽腫，頸部嚢胞性疾患

肉芽腫とは、炎症反応による病変であり、病理組織学的に類上皮細胞やマクロファージなどの炎症細胞が集合し、その周囲をリンパ球、形質細胞、線維組織が取り囲む巣状病変のことを言う¹⁾。頭頸部領域における肉芽腫性疾患としては、結核、猫ひっかき病、サルコイドーシス、化膿性肉芽腫、コレステリン肉芽腫、多発血管炎性肉芽腫、アレルギー性肉芽腫性血管炎、木村病、ランゲルハンス細胞組織球症などが挙げられる。

今回われわれは非典型的な頸部嚢胞性疾患と判断し、診断と治療を目的に手術を施行した結果、結核性肉芽腫であった1例を経験した。結核はさまざまな臓器に多彩な感染症状を引き起こす感染症であるが、結核を疑って精査を進めない限り診断に至ることが難しい疾患である。頸部の結核性肉芽腫について文献的考察を加え報告する。

症例提示

症例：34歳，男性。

主訴：頸部腫瘍。

嗜好歴：喫煙・飲酒歴なし。

国籍：ネパール連邦民主共和国。

現病歴：X-10年に来日しホテルの職員として勤

務していた。年に1回程度の頻度で帰国をしていた。X年、自身で前頸部を触っていたところ腫瘤を自覚した。軽度の圧痛を伴っていたが自発痛がなかったため自身の判断で経過を見ていた。1か月程度経過した時点で圧痛は改善したが、腫瘤は残存していたため精査、加療目的で当センターを受診した。

初診時所見：頸部正中に鶏卵大の腫瘤を認めた(図1)。皮膚の発赤はみられなかったが軽度の圧痛を認めた。触診と嚥下運動に伴う可動性は不良であった。頸部リンパ節の明らかな腫脹はなく、その他咽喉頭領域に所見を認めなかった。

血液生化学検査初見：WBC 6,000/ μ l, AST 41 U/l, ALT 46 U/l, CRP 0.61 mg/dl, TSH 1.32 μ U/ml, Free T3 3.04 pg/ml, Free T4 0.94 ng/ml, Tg 0.89 ng/l, SCC 0.7 ng/ml, CYFRA 1.6 ng/ml, HIV 抗体価<1.00S/COと軽度の肝機能障害とCRPの上昇が見られた。

頸胸部造影CT所見：甲状腺尾側に気管前壁と接する、約24×30mmの辺縁造影効果を伴う比較的境界明瞭な内部低吸収域の病変として描出された(図2)。撮影された範囲内に有意な頸部リンパ節腫脹はみられなかった。胸部に異常所見はみられなかった。

*責任著者



図 1 初診時頸部所見

頸部正中に鶏卵大の腫瘤を触知した。皮膚の発赤はみられないが軽度の圧痛を伴っており、嚥下時の可動性も不良であった。

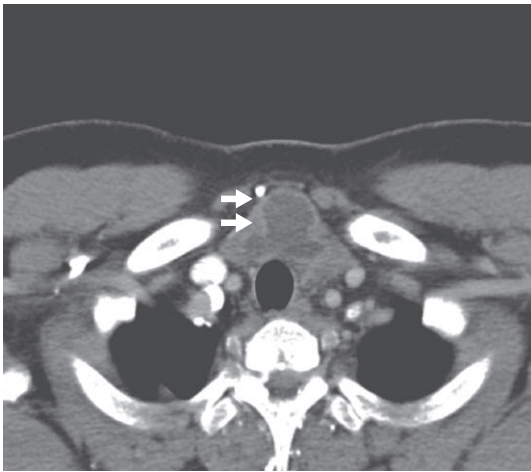


図 2 頸部造影CT所見

甲状腺尾側に気管前壁と接する、約24×30mmの辺縁造影効果を伴う比較的境界明瞭な内部低吸収域の病変として描出された。

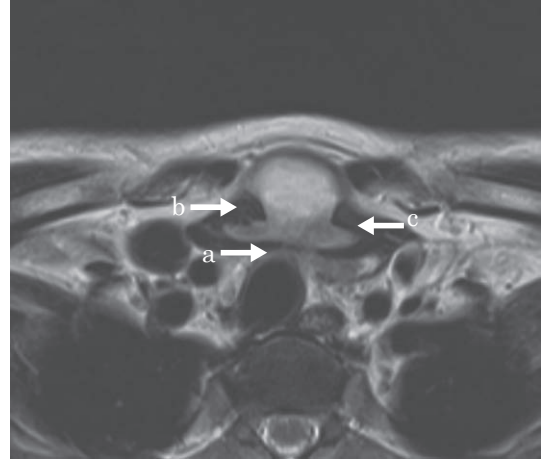


図 3 頸部MRI T2水平断

胸骨舌骨筋を正中で圧排するように、壁に造影効果を伴う内部高信号の嚢胞性疾患として描出された。気管前面をa、胸骨舌甲筋右側をb、左側をcで示す。

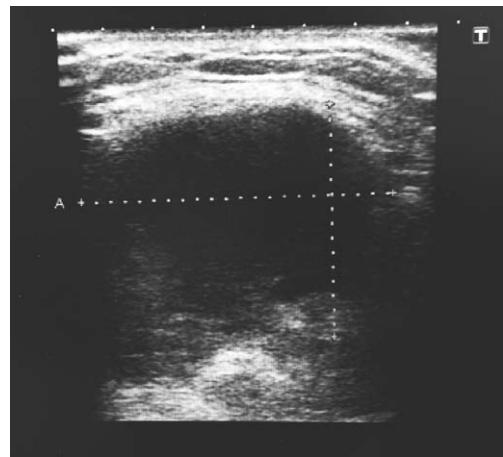


図 4 頸部超音波検査所見

内部低エコーな嚢胞性変化として描出された。

頸部MRI検査所見：STIRとT2画像にて内部高信号の液体貯留を伴う嚢胞性疾患として描出された(図3)。嚢胞は気管前面から胸骨舌骨筋を左右に圧排するように存在していた。気管や甲状腺、副甲状腺との明らかな連続性はみられなかった。

頸部超音波検査所見：甲状腺峡部と気管前壁に接する内部低エコーな嚢胞性変化として描出された(図4)。カラードップラーで嚢胞壁と内部の血流はみられなかった。

穿刺吸引細胞診：乳白色の内容液が穿刺吸引された。細胞所見は壊死様物質を背景に血液と好中球を認めるのみであり、細胞診の結果は「正常もしくは

良性」の診断であった。

術前診断および治療方針：頸部造影CT、頸部MRIで嚢胞性疾患と判断した。頸部嚢胞性疾患として甲状腺嚢胞、副甲状腺嚢胞、甲状舌管嚢胞、胸腺嚢胞、気管支原性嚢胞などを鑑別に挙げたが確定診断を下すことは出来なかった。頸部超音波検査でもやはり嚢胞性疾患であり、乳白色の内容液が穿刺吸引されたことから感染を伴った非典型的な頸部嚢胞性疾患と診断した。確定診断と治療を兼ねて全身麻酔下での嚢胞摘出術の方針とした。

手術所見：全身麻酔下頸部伸展位にて手術を開始した。病変直上を皮膚割線に沿って横切開した。皮



図 5 手術所見

a: 病変直上を皮膚割線に沿って横切開した。皮下脂肪直下に病変の壁構造を確認した。
b: 病変は甲状腺や副甲状腺、気管前壁と明らかな連続性が見られなかった。

下脂肪直下に病変の壁構造を確認した(図5a)。病変は術前の画像所見通り胸骨舌骨筋を左右に圧排するように正中に存在した。筋組織や周囲組織との境界は一部不明瞭であり、周辺組織を病変につけるように摘出をすすめた。甲状腺や副甲状腺、気管前壁との連続性はなかった(図5b)。

病理組織学的所見: 検体は55×30×15mmであった。HE染色標本でランゲルハンス型巨細胞を伴う類上皮肉芽腫の形成を認め、中心部に乾酪壊死を伴っていた(図6a, 6b)。病理組織上嚢胞性病変ではなく、リンパ節組織も認められなかった。結核・抗酸菌症による肉芽腫性病変と診断した。

術後診断: 病理標本にZiehl-Neelsen染色とPAS染色を追加したがいずれも陰性であった。QuantiFERON®-TB検査を追加で施行した結果9.97IU/mlと高値であり、手術検体からpolymerase chain reaction(以下PCR)法を行った結果*M. Tuberculosis* DNAの増幅が得られ肺外結核による頸部結核性肉芽腫と診断した。

術後経過: 結核専門医へ依頼し抗結核薬での加療開始となった。

考 察

本症例は術前に嚢胞性病変と判断をし、且つ結核性病変を鑑別に挙げることができず、診断と治療目的に手術を施行して初めて結核性肉芽腫と診断がついた反省すべき症例である。Cantrellらは①頸部腫

瘍②ツベルクリン反応陽性③病理組織所見で乾酪壊死の存在④生検検体から抗酸菌の証明⑤生検検体からの培養で結核菌の証明⑥抗結核薬治療に反応する、という6項目中3項目以上を満たせば結核性リンパ節炎と診断してもよいとしており、本症例では①③④を満たしている¹⁾。

肉芽腫性疾患とは炎症反応による病変であり、頭頸部における肉芽腫性疾患としては結核、猫ひっかき病、サルコイドーシス、化膿性肉芽腫、コレステリン肉芽腫、多発血管炎性肉芽腫、アレルギー性肉芽腫性血管炎、木村病、ランゲルハンス細胞組織球症などが挙げられる。病理組織学的には類上皮細胞、巨細胞、マクロファージなどの炎症性細胞が集合し、その周囲をリンパ球や形質細胞、線維組織が取り囲む病変である²⁾。

本症例は病理組織学的診断にて検体よりリンパ節組織であることを証明する所見は認められなかったが、頸部の結核性リンパ節炎が進行した結果生じた二次的な変化と考えられる。結核性リンパ節炎は頭頸部の結核性病変で一番頻度が高く、約90%が頸部に生じるとされる³⁾。結核性リンパ節炎はその病気に応じて5型に分類される。Ⅰ: 初期腫脹型、Ⅱ: 浸潤型、Ⅲ: 膿瘍型、Ⅳ: 潰瘍・浸潤型、Ⅴ: 硬化型である^{3,4)}。本症例はⅢの膿瘍型が頸部正中に生じた結果、肉芽腫性変化をきたし、結果として膿瘍を取り囲むような嚢胞状変化をきたしたのではないかと考える。

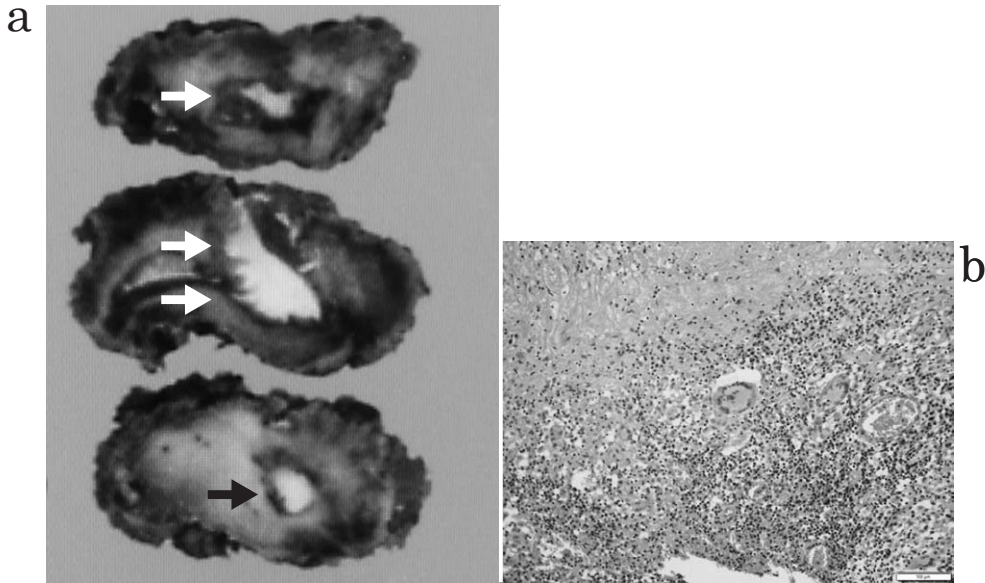


図 6 病理組織学的所見

a: 乾酪壊死が中央部分にみられた。

b: 乾酪壊死の周囲にランゲルハンス型巨細胞を伴う類上皮肉芽腫が確認された。

結核性リンパ節炎の感染経路については肺結核からの進展によるもの（肺結核の初期感染後に肺門リンパ節や縦隔リンパ節経由で上行性に頸部リンパ節に進展）と、肺外結核による初期変化として生じるものがある^{5,6)}。肺結核を伴わない肺外結核によるものが約1/3程度と言われている²⁾。本症例においても胸部CTで肺病変はなく、また喀痰検査でガフキーは陰性であったことから肺外結核によるものであったと考える。肺外結核の感染経路としては血行性や管腔性、外傷などからの直接性感染が存在する。本症例においては頭頸部領域の明らかな外傷の既往はなかった。

頸部の結核性リンパ節炎の特徴としては多くが慢性の経過を辿るため疼痛の症状が軽微であったり伴わない場合がある。好発部位としては内頸静脈や後頸三角領域に多く、両側性の場合も多い²⁾。好発年齢としては10～30歳代であるが悪性腫瘍のリンパ節転移との鑑別が必要となる場合も多い²⁾。また結核は国や地域により発症の頻度に差がある。本邦は先進国ではあるが、こと結核に関しては中蔓延国に分類される⁴⁾。高蔓延国にはカンボジア、フィリピン、ベトナム、中国、インドネシア、バングラディッシュ、インド、タイなどが挙げられる。ネパールに

関しては定点観測が不十分なため推定罹患率が高い国という位置付けである⁷⁾。これらの特徴や疾患の背景を考えると、本症例は、軽度の圧痛のみで自発痛を伴っていなかった点、慢性の経過を辿っていた点、血液検査所見にて軽微な炎症反応の上昇を伴っていた点、30歳代のネパール人であった点、などから結核性病変を鑑別に挙げるべきであったと考える。また仮にネパール人でなかったとしても、本邦における結核感染が増加傾向であるという背景から結核性病変を鑑別に挙げる必要性があった。一方、画像所見で嚢胞性変化を呈していた点、病変の部位が頸部正中に単発の変化であった点などは結核性リンパ節炎としては非典型的であった。

結核性病変を鑑別に挙げることは結核の蔓延を防ぐためにも非常に重要なことである。結核の感染は飛沫感染もしくは空気感染である。結核性リンパ節炎を疑えば先述したように肺結核からの進展かどうか重要であり、喀痰の抗酸菌検査を施行したり肺病変の有無を画像診断にて調べることになる。これらの検査の結果から結核菌の排菌の有無を確認し感染予防を行うことが可能となる。本症例では病理組織学的診断の後に喀痰の抗酸菌検査を施行しており、万が一排菌が見られていた場合には、患者周辺

だけでなく本症例に関わった医療従事者に対しての接触者検診を要する事態になっていた。

結核性病変は「結核」を疑うことが非常に重要である⁸⁾。その理由は、結核を疑い結核であることを証明するために必要な検査を行っていくことで診断に至るからである。結核の診断とは抗酸菌塗抹、抗酸菌培養、PCR法による結核菌の証明、病理組織学的に乾酪壊死、ランゲルハンス型巨細胞、類上皮肉芽腫の証明である。穿刺吸引により得られた検体での抗酸菌塗抹の陽性率は0～62%、培養での陽性率は19～81%、PCR検査での陽性率が47～96%と報告されている⁹⁾。穿刺吸引細胞診で乾酪壊死、ランゲルハンス型巨細胞、類上皮肉芽腫の3つ全てが同一標本に認められるのはおおよそ40%程度とされている¹⁰⁾。これらの報告を踏まえると、結核性リンパ節炎を疑った場合に穿刺吸引法での抗酸菌塗抹、抗酸菌培養、PCRや穿刺吸引細胞診で診断が得られない症例が一定数存在するため、確定診断が得られない場合は確定診断を得るために開放生検を施行すべきであると考えられる。

非典型的な頸部腫瘍に遭遇した場合は、鑑別疾患の1つに必ず結核性病変を挙げておくことが重要である。本邦は結核の中蔓延国に分類されている。結核性病変の診断を満たすために必要な検査を組み込みながら精査を進めていくことで早期に診断を得られると考えられ、結果として結核の蔓延を防ぐこととなる。

まとめ

非典型的な嚢胞性変化を伴った頸部結核性肉芽腫

の1例を経験した。非典型的な頸部腫瘍で軽微な炎症反応を伴っている場合には結核性病変を鑑別の1つとして常に念頭におきながら精査・加療を進めることが大切である。

文 献

- 1) Cantrell RW, Jensen JH, Reid D. Diagnosis and management of tuberculous cervical adenitis. *Arch Otolaryngol.* 1975;101:53-57.
- 2) 豊田圭子. 頭頸部の肉芽腫性疾患. 臨画像. 2012;28:1045-1055.
- 3) 三木 誠. 肺外結核の診断と治療. 治療. 2013;95:1165-1169.
- 4) 松本吉史, 小柏靖直, 甲能直幸. 頸部リンパ節結核9症例の検討. 日耳鼻会報. 2014;117:184-190.
- 5) 吉福孝介, 西本謙吾, 松崎 勉. 頸部リンパ節結核の6例. 耳鼻と臨. 2015;61:35-40.
- 6) Goldberg I, Avidor I. Isolated tuberculous tenosynovitis of the Achilles tendon. A case report. *Clin Orthop Relat Res.* 1985;(194):185-188.
- 7) 細田のぞみ, 栗原 潔, 武井研二, ほか. 腹壁腫瘍で発見された結核性肉芽腫の1女兒例. 北里医. 1990;20:250-253.
- 8) 渡辺健太, 中屋宗雄, 大貫裕香, ほか. 診断まで長期間を要した甲状腺結核の1例. 耳鼻・頭頸外科. 2010;82:881-884.
- 9) 三橋拓之, 千年俊一, 前田明輝, ほか. 頸部リンパ節結核29症例の臨床的検討 診断における低侵襲な穿刺吸引法の位置づけ. 日耳鼻会報. 2012;115:1037-1042.
- 10) 草間 博, 海老原義郎. 結核症の細胞診 肉芽腫の細胞学的鑑別. 病理と臨. 1997;15:425-428.

A CASE OF NECK TUBERCULOID GRANULOMA

Yukiomi KUSHIHASHI^{1,2,3)}, Hideyuki KATSUTA^{1,2,3)}, Kenichiro IKEDA^{1,2,3)},
Syunya EGAWA^{1,2,3)}, Youichi IKENOYA²⁾, Yoshiro SAITO^{1,3)},
Yuya KURASAWA^{1,3)}, Yurika KIMURA²⁾, Hitome KOBAYASHI²⁾
and Toshikazu SHIMANE^{1,2,3)}

¹⁾ Head and Neck Oncology Center, Showa University

²⁾ Department of Otorhinolaryngology, Showa University School of Medicine

³⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Oral Oncology, Showa University School of Dentistry

Abstract — Tuberculosis (TB), an infectious disease that causes diverse symptoms in various organs of the body, is difficult to diagnose unless persons with suspected TB undergo close examination. Here, we encountered a case diagnosed with tuberculous granuloma based on histopathology after surgical diagnosis and the treatment of an atypical-appearing cervical cyst. In terms of atypical lesions, it is crucial that the tuberculous lesion must be listed as one of the differential diagnoses. We discuss tuberculous granuloma of the neck, along with the results of a literature review.

Key words: tuberculosis, tuberculoid granuloma, neck cystic lesion

[受付：3月3日，受理：3月16日，2017]