

&lt;原 著&gt;

## 頭頸部慢性型放線菌症の2例

島根大学医学部 小児科<sup>1)</sup> 松江赤十字病院 耳鼻咽喉・頭頸部外科<sup>2)</sup>松江赤十字病院 歯科口腔外科<sup>3)</sup>門脇 朋範<sup>1)</sup> 中村 陽祐<sup>2)</sup> 武田真紀子<sup>2)</sup> 小田 直治<sup>2)</sup> 大竹 史浩<sup>3)</sup> 伊藤 和行<sup>2)</sup>

## Two Cases of Chronic Actinomycosis of the Head and Neck

Tomohiro KADOWAKI<sup>1)</sup>, Yosuke NAKAMURA<sup>2)</sup>, Makiko TAKEDA<sup>2)</sup>,  
Naoharu ODA<sup>2)</sup>, Fumihiko OTAKE<sup>3)</sup> and Kazuyuki ITO<sup>2)</sup><sup>1)</sup> *Division of Pediatrics, Faculty of Medicine, Shimane University*<sup>2)</sup> *Department of Otolaryngology, Head and Neck Surgery*<sup>3)</sup> *Department of Dentistry, Oral and Maxillofacial Surgery, Japanese Red Cross Matsue Hospital*

Key words : 放線菌症、頭頸部、慢性型

## はじめに

放線菌症は、口腔内常在菌である放線菌類による炎症性疾患である。同症は急性型と慢性型の2型に分類されるが、近年は抗菌薬の普及および使用のため、慢性型の肉芽腫性病変として経験することが多い。そのため、急性型と比べて悪性腫瘍との鑑別が困難となり、診断の遅れにつながることもある。今回われわれは、頭頸部領域に生じた慢性型の放線菌症2症例の治療経験をしたので、文献的考察を含めて報告する。

## 症 例

症例1 : 75歳、男性

主訴 : 左頬部腫脹。

現病歴 : 2011年3月初旬から左頬部に腫脹出現。同年3月中旬に近医耳鼻咽喉科を受診。左頬部に約4cm大の皮下腫瘍を触知し、発赤を伴っていた。CAM (クラリス®) 内服後も徐々に腫脹の増大を認めた。CT・MRI検査を実施、悪性腫瘍を否定できないとのことで、3月下旬紹介入院となった。

現症および検査所見 : 左頬部に板状硬結を認め、表面は硫黄顆粒様であった (図1)。口



図1

症例1の初診時所見。左頬部に硬結を触知し、表面は硫黄顆粒様であった。

腔内は左上456の歯肉頬移行部から頬粘膜の腫脹、軽度圧痛を認めた。体温36.5℃。血液検査はWBC 12300/ $\mu$ l、CRP 6.58 mg/dlと炎症反応の上昇を認めた。造影CT検査で、左上顎部から頬、顔面に腫脹を認め、上顎骨に接する領域に、境界不明瞭な造影増強効果のある腫瘍を認める (図2)。左上45に骨吸収像あり。開放膿細菌検査で、グラム陽性桿菌の菌塊を認めた。細胞診でも菌塊を認めた (図3)。

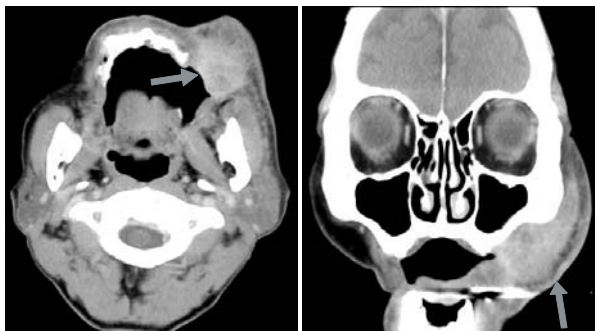


図2

症例1のCT検査所見。左；結節は口腔粘膜にも接している。右；上顎骨に接する領域に、境界不明瞭な造影増強効果のある結節を認める。

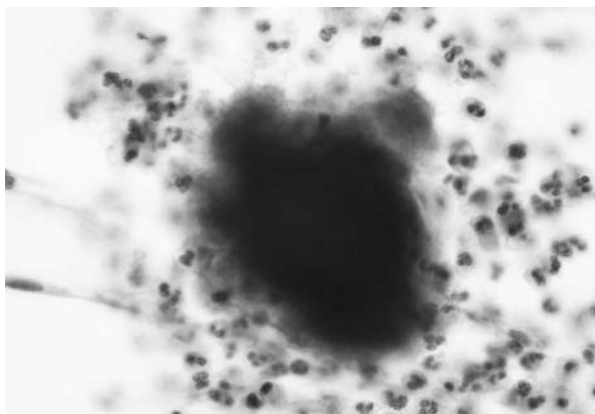


図3

症例1のFNA細胞診所見。23G針で穿刺、無数の好中球およびマクロファージを認める。放線菌様の菌塊が散見された。異型細胞は認められなかった。

経過：排膿部位の細菌学的検査、病理学検査を実施、以上より、頬部放線菌症と診断、ペニシリンGカリウム（PCG）500万単位×4回/日を開始した。約3週間後、細菌培養検査でグラム陽性桿菌の菌塊を認めた。硬結軽快認め、転院となり、計6週間点滴後、腫脹軽快、6ヵ月AMPC（サワシリン<sup>®</sup>）1000mg内服。治療後1年再発なく経過良好である。

症例2：79歳、男性

主訴：左顎下部の発赤、腫脹。

既往歴：胃癌術後、大腸癌術後、胸部動脈瘤術後。

現病歴：独居のためホームヘルパーによる配食サービスを受けていた。2011年3月下旬、来

訪したヘルパーの方が顎下部の腫脹があることに気づき、救急外来受診となった。

現症および検査所見：左顎下部の発赤、腫脹、板状硬結を認めた（図4）。口腔内は左下顎大臼歯に齲歯があり、左下8に歯肉ポケット深く腫脹を認め、パノラマX線写真で、同部位に根尖病巣を認めた。体温37℃。血液検査はWBC 9400/ $\mu$ l、CRP 3.57mg/dlと炎症反応は軽度であった。造影CT検査で、左側頸部腫脹、左内深頸領域に軟部影の増強を認めた（図5）。非開放膿細胞診では炎症細胞を認めるのみであった。自壊しそうな部位がありデルマパンチで皮膚生検し、放線菌を確認した（図6）。

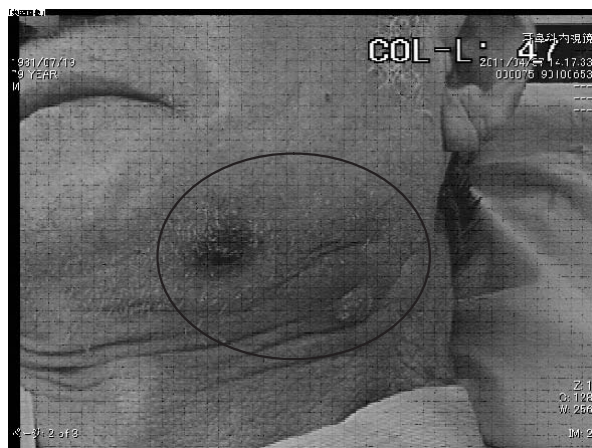


図4

症例2の初診時所見。左顎下部に硬結を触知し、発赤腫脹を認めた。

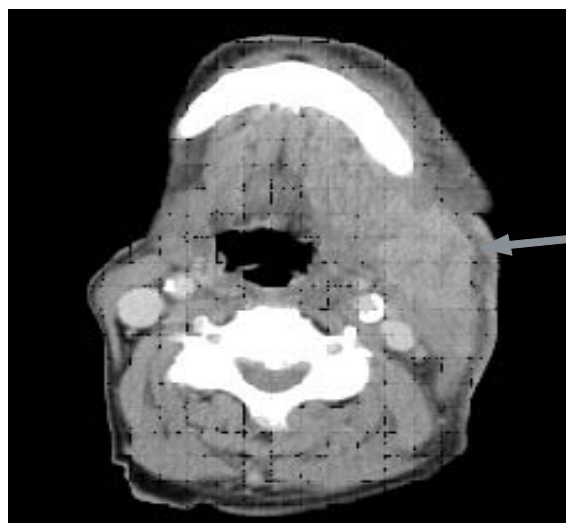


図5

症例2のCT検査所見。左内深頸領域に辺縁不明瞭な腫瘤性病変を認めた。

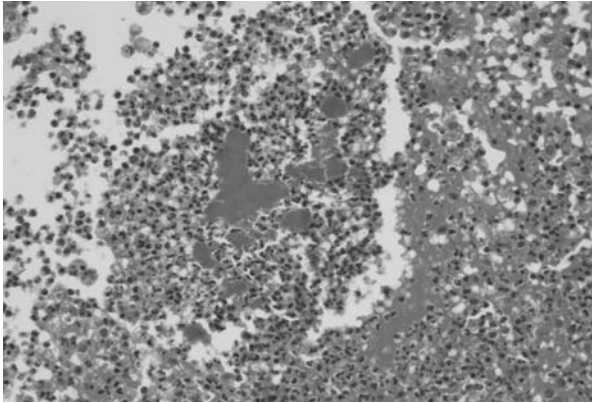


図6

症例2の病理組織学的所見。表皮の非薄化、表皮直下～真皮にかけて出血と好中球主体の炎症細胞浸潤よりなる膿瘍形成がみられる。膿瘍内に放線菌様菌塊を認めた。

経過: 菌性感染が疑われ、歯科口腔外科入院、抜歯およびFMOX(フルマリン<sup>®</sup>)、DRPM(フィニバックス<sup>®</sup>)で消炎治療を行った。腫脹の改善なく、5日目当科転科、細菌学的検査、病理学検査を行い、9日目顎下部放線菌症と診断、PCG 500万単位×4回/日を開始、2週間継続、腫脹軽快、点滴継続が困難となり退院。以後AMPC(サワシリン<sup>®</sup>) 1000mg内服を6ヵ月継続、治療後1年再発なく経過良好である。

## 考 察

放線菌は、しばしば菌糸状の発育を示し真菌に類似する点があるが、原核生物であるので真正細菌に分類される<sup>1)</sup>。そして、アクチノミセス属のような偏性嫌気性のグループと、ノカルジア属に代表される好気性菌のグループに大別され、抗生物質に感受性がある<sup>1)</sup>。

1986年、山本ら<sup>2)</sup>が、1973～1982年の放線菌症137例中、顔面・頸部59例(43%)、胸部23(16%)、腹部47(34%)と報告している。最近では主要な起炎菌は *Actinomyces israelii* (*A. israelii*) であり、感染部位は顔面・頸部60%、胸部20%、腹部20%とされる<sup>1)</sup>。*A. israelii* は自然界からは分離されず、健康人の口腔、特に齲歯、歯垢、扁桃窩等に常在細菌叢として生息し、他の細菌による口腔の感染がある場合や、抜歯・粘膜損傷、顎骨骨折等の機会に

初めて病原性を発揮する<sup>3)</sup>。放線菌症は、隣接組織へ連続性に波及する炎症性疾患で、膿汁中に白黄色の硬い菌塊を形成する<sup>4)</sup>。臨床的に疼痛と発熱を伴い急激に腫脹し膿瘍を形成する急性型と、長時間をかけ組織が硬結、次第に板状硬になる慢性型に分類される<sup>5)</sup>。混合感染を生じる共存菌の種類により急性症状、または慢性症状を呈するのかが異なっており、*Staphylococcus aureus* や  $\beta$ -Hemolytic streptococci が共存する場合は急性症状を、*Aggregatibacter actinomycetemcomitans* が共存する場合は慢性症状を示すとの報告がある<sup>6)</sup>。慢性型の特有の所見は、本菌の組織破壊作用とそれに続く線維化によるとされる<sup>7)</sup>。症例1、2ともに高熱を呈しておらず、炎症反応は軽度で、板状硬結を呈していた。症例1は自壊後であり、症例2は自壊前であった。症例1は、抜歯窩があり、症例2は齲歯があり、熊川ら<sup>5)</sup>の報告同様、口腔から細菌が侵入し、炎症が波及した可能性がある。なお、本症例では、細菌学的検索を行ったものの、共存菌の同定はできなかった。

症例1、2とも抗生剤での治療歴があるが、奏功せず画像検査では腫瘍性病変が鑑別診断に挙がった。しばしば悪性腫瘍との鑑別が困難であった報告<sup>5) 8) -10)</sup>が多い。自壊し瘻孔を生じた場合、結核との鑑別が必要<sup>11)</sup>となり、本症でも否定している。

確定診断を得るためには、細菌学的検査または病理学的検査で放線菌を証明すればよい。放線菌は嫌気性で抗生物質が使用されている例が多いため、菌の検出を困難にしている。深澤ら<sup>12)</sup>は、過去の報告より菌が同定できたものは17例中2例(12%)といている。近年放線菌症は慢性型を呈する率が増加している<sup>4)</sup> ために、細菌学的検査から菌が検出されず、病理学的検査で確定診断された症例が多い。実際には、放線菌の分離同定は極めて困難であり、多くの場合はこれらの臨床像や菌塊により放線菌と診断されている<sup>9) 10)</sup>。まれではあるが菌塊を形成しない *A. naeslundii* の放線菌症も存在する<sup>1)</sup>。久保田<sup>13)</sup> は以下の臨床所見は放線菌症診断の手掛かりになるとしている。

- 1) 境界不明瞭な板状硬結と腫脹、患部皮膚の紫紅色の変色。
- 2) 腫脹の程度に比較して自発痛と圧痛が軽度であり、症状の進行につれて発生する多発性小膿瘍とその自壊、引き続き難治性瘻孔の形成。
- 3) 膿汁や肉芽組織内の灰白色ないし、黄白色の硫黄顆粒の存在。

本症例では、症例1は細菌学的、病理学的に、症例2は病理学的に診断しえたが、上記項目にはほぼ該当しており、臨床所見は早期診断に寄与するものと考えられる。

治療は1960年代以降、高用量のペニシリンが第一選択で投与され、有効とされている<sup>14)</sup>。軽症例ではPCV(1日量2~4g)あるいはAMPC(1日量1500mg)の経口投与2ヶ月間続けるのが一般的である<sup>15)</sup>。ペニシリンアレルギーのあるものに対しては、テトラサイクリン、クリンダマイシン、リンコマイシン、エリスロマイシンなどの長期投与が推奨されている<sup>14) 16) 17)</sup>。重症例では壊死組織の除去、膿瘍のドレナージのための手術が適応となる。標準的にはPCG(1日量1000~2000万単位)を4~6週間施行後、さらに経口ペニシリンを6~12ヶ月の治療が推奨される<sup>12) 15)</sup>。その他の報告では、抗生剤の投与期間に関しては2~7ヶ月は必要であるとされている<sup>9) 18)</sup>。慢性型でみられるような線維化が強く血流の少ない環境にある菌を根絶するためには大量で長期間の投与が必要である<sup>15) 18)</sup>。石橋ら<sup>19)</sup>の報告では、智歯周囲炎から波及した放線菌症例で、膿瘍切開後に排膿は認めなくなったものの肉芽の増生が長期にみられたことから、拔牙と瘻孔部搔爬を行い治癒しえたものがある。本症例は、口腔からの感染が誘因と考えられ、早期の歯科治療および長期間の抗生剤治療を実施し有効であったと考えられる。

## ま と め

1. 頭頸部領域に発生した放線菌症を報告した。
2. 2症例とも細菌学的もしくは病理学的に診断したが、臨床的に強く疑われたため、早期診断、治療が可能であった。

3. 両症例とも口腔からの感染の可能性が示唆された。
4. 両症例とも治療し約1年、再発なく経過良好である。

なお、本論文の要旨は第49回日本耳鼻咽喉科学会鳥取県地方部会(平成23年7月、米子)にて口演した。

## 文 献

- 1) 水口康雄:戸田新細菌学.改訂33版.吉田眞一,柳雄介 他 編,南山堂.東京,2009,650-653頁.
- 2) 山本洋之,加藤一吉 他:小児左頸部放線菌症の1例ならびに本邦10年間137例の集計(1973~1982年).鳥取医学雑誌14:61-65,1986.
- 3) 大木孝一,和田公平 他:頭頸部放線菌症の2症例.耳鼻臨床86:1757-1762,1993.
- 4) 吉田幸夫:頸部放線菌症.耳喉頭頸63増:248-249,1991.
- 5) 熊川孝三,船坂宗太郎 他:側頭部に発症した放線菌症:耳喉頭頸55:975-979,1983.
- 6) Pulverer G, Schutt-Gerowitt H, et al: Human cervicofacial actinomycoses: microbiological data for 1997 cases. Clin Infect Dis 37:490-497,2003.
- 7) Pollock PG, Meyers DS, et al: Rapid diagnosis of actinomycosis by thin-needle aspiration biopsy. Am J Clin Pathol 70:27-30,1978.
- 8) 増田敦彦,宇野研吾 他:顎下部アクチノマイコーシスの1例.耳喉頭頸65:943-946,1993.
- 9) 石川敏夫,戸島均 他:頭頸部放線菌症の4症例.耳鼻臨床93:1041-1046,2000.
- 10) 森脇計博,坂田義治 他:急性型・慢性型頸部放線菌症の検討.日耳鼻103:1238-1241,2000.
- 11) 宮澤裕,岩下和人 他:頸部リンパ節結核の3例.耳鼻36:1101-1104,1990.
- 12) 深澤元晴,岡田聡子 他:頸部放線菌症の1例.耳喉頭頸62:783-786,1990.
- 13) 久保田修,岡崎吉記 他:悪性腫瘍が疑われた頸部放線菌症の1例. JOHNS 16:949-953

2000.

- 14) Bennhoff DF: Actinomycosis ; Diagnostic and therapeutic considerations and a review of 32 cases. Laryngoscope 94: 1198-1217, 1984.
- 15) 金井直樹 : 頸部放線菌症. JOHNS 21 : 1381-1384, 2005.
- 16) Fradis M, Zisman D, et al : Actinomycosis of the face and neck. Arch Otolaryngol Head Neck Surgery 102: 87-89 1976.
- 17) 小川晃弘, 赤木博文 他 : 頸部肉芽腫性病変を併発した扁桃放線菌症の1例. 耳鼻43 : 193-199, 1997.
- 18) 鎌田英男, 二宮洋 他 : 悪性腫瘍が疑われた頸部放線菌症. JOHNS 17 : 1798-1800, 2001.
- 19) 石橋修, 杉山芳樹 他 : 智歯周囲炎から波及した頬部放線菌症の1例. 日口診誌17 : 221-224, 2004.