

影治 里穂 飛田泰斗史 川島 啓道

徳島赤十字病院 皮膚科

## 要 旨

55歳男性。初診1か月前より左眼瞼の腫脹が出現。近医に通院するも改善なく、当科紹介となった。初診時、左上眼瞼は、表面常色で半球状に隆起していた。眼窩部MRIでは左上眼瞼の腫脹と、境界不明瞭なSTIR高信号域を認めた。抗ヒスタミン剤（ベポタスチンベシル酸塩）、ドキシサイクリンを内服するも改善なかった。病理組織像では、真皮全層に浮腫性変化と乾酪壊死を伴わない小型の類上皮細胞性肉芽腫を認めた。以上より、肉芽腫性眼瞼炎と診断し、ステロイドの局所注射とトラニラストの内服を開始した。トラニラストは副作用のため継続できなかった。局所注射1回で症状は軽快し、2か月経過を観察したが再燃はなかった。肉芽腫性眼瞼炎は稀な疾患であるが、眼瞼の腫脹を認めた場合には同疾患を鑑別にいれる必要がある。若干の文献的考察を加え報告する。

キーワード：肉芽腫性眼瞼炎，ステロイド局所注射，トラニラスト

## はじめに

肉芽腫性眼瞼炎は、眼瞼の持続性腫脹を示し、病理組織像で類上皮肉芽腫を認める疾患である。今回、我々は臨床および病理像から肉芽腫性眼瞼炎と診断し、ステロイド（トリアムシノロンアセトニド）の局所注射が有効であった1例を経験したため、文献的考察を加え報告する。

## 症 例

**患 者**：55歳男性

**主 訴**：左眼瞼の腫脹

**家族歴**：特になし

**既往歴**：高血圧

**現病歴**：来院1か月前より左眼瞼の腫脹が出現し、同側の視野障害が顕著となった。近くの眼科を受診し、点眼薬（詳細不明）を処方されるも軽快なく近くの皮膚科を受診した。リンパ腫等を疑われ、精査目的に当科紹介となった。

**初診時現症**：左上眼瞼は眼瞼から眉毛にかけて表面

常色で半球状に隆起していた。全体に腫脹しているが熱感は認めず、掻痒や疼痛などの自覚症状はみられなかった（図1A, B）。

**血液検査所見**：RBC  $495 \times 10^4/\mu\text{L}$ ，Hb 15.2g/dl，WBC  $5,160/\mu\text{L}$ （Neut 53.7%，Lymph 33.1%，Mono 6.8%，Eosino 6.0%，Baso 0.4%），AST 29U/L，ALT 44U/L，総ビリルビン 0.6mg/dL，LDH 191U/L，CK 200U/L，CRP 0.11mg/dL，可溶性IL2 507U/mL，TSH  $0.97\mu\text{IU/mL}$ ，FT3  $2.97\text{pg/mL}$ ，FT4 0.85ng/dL，抗核抗体 40倍

**画像検査所見**：MRIでは左上眼瞼，下眼瞼，右頬部内側で腫脹し，皮下脂肪織内に境界不明瞭なSTIR高信号域を認めた（図2）。眼窩内，眼瞼内に腫瘤形成はなかった。

**病理組織学的所見**：左上眼瞼よりメス生検を行った。真皮全層にわたって，浮腫性変化がみられ（図3A），真皮浅層から中層の血管および付属器周囲にはリンパ球，組織球の浸潤が島状にみられた（図3B）。一部で，乾酪壊死を伴わない小型の類上皮細胞肉芽腫が認められた（図3C）。

## 治療および経過

ベポタスチンベシル酸塩20mg/日，ドキシサイクリン100mg/日を内服開始するも症状は改善しなかった．生検後，肉芽腫性眼瞼炎と診断した．トラニラストを内服開始し，トリアムシノロンアセトニド4 $\mu$ gを左上眼瞼に局注した．1週間後の再診時に

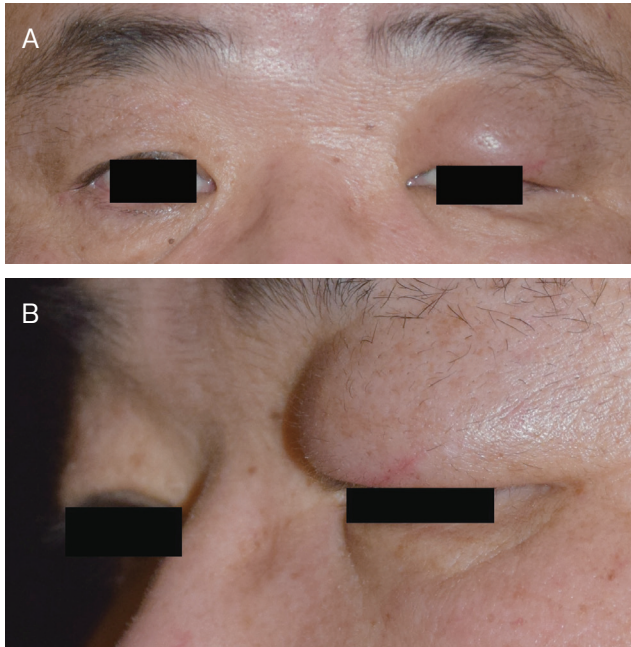


図1 臨床像

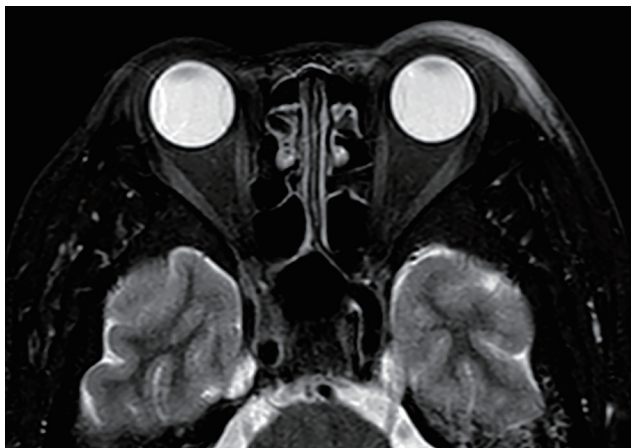


図2 眼窩MRI所見

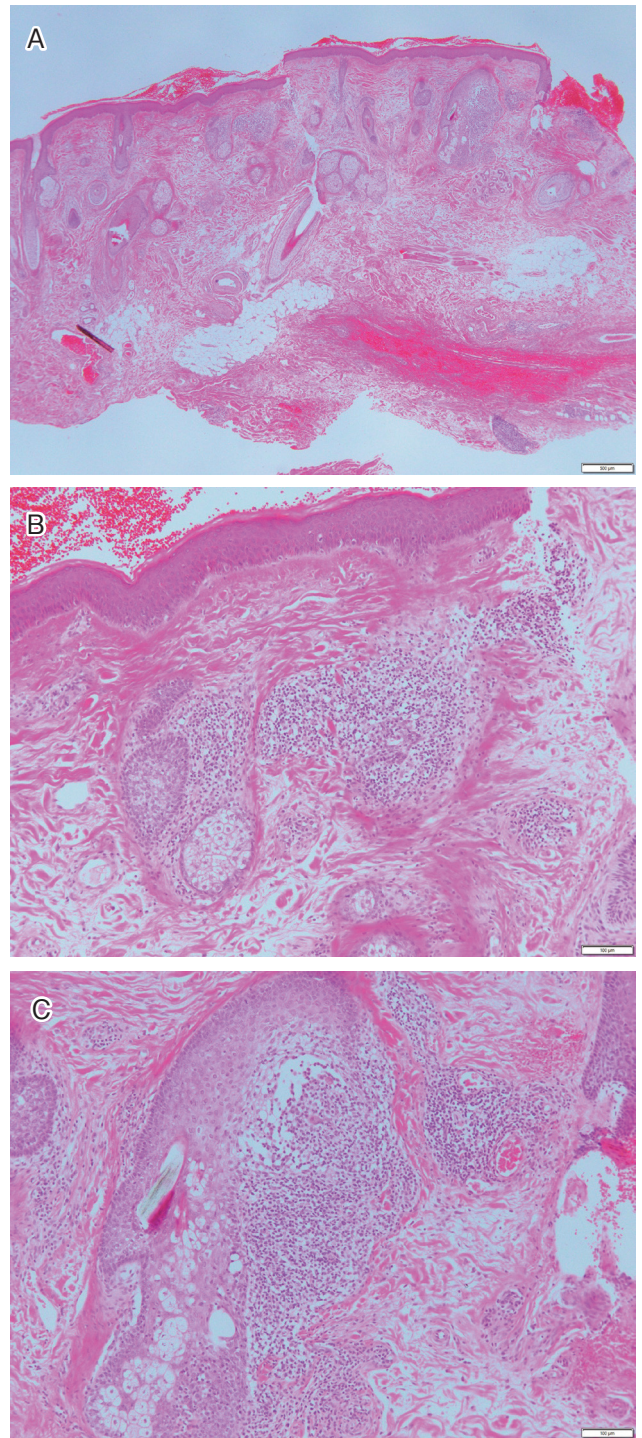


図3 病理組織像



左上眼瞼の腫脹は消失し、視野障害も軽快した。トラニラストは集中力がされるという副作用が出現したため希望により中止した。2か月経過を観察したが、症状の再燃は認めなかった。その後再診はなく、再発の有無は不明である。

## 考 察

肉芽腫性眼瞼炎は、臨床的に眼瞼の持続的腫脹を呈し、病理組織学的に類上皮細胞肉芽腫を認めることを特徴とする疾患である。口唇、歯肉部、頬部、陰部でも生じることがあり、肉芽腫口唇炎など、発症部位別の名称で

呼ばれている<sup>1)</sup>。病因の詳細は不明であるが、多くの症例の病理組織像で浮腫性変化がみられていることから、リンパ管の閉塞や損傷から持続性、再発性の浮腫が生じ、肉芽腫性炎症を惹起すると推察されている<sup>2)</sup>。本症例の病因も不明であるが、病理組織像で著明な浮腫性変化が認められた。その他の病因としては、齲菌などの感染病巣、金属アレルギーなども想定されている<sup>1)</sup>。上眼瞼に持続する腫脹が見られた場合の鑑別診断としては、肉芽腫性眼瞼炎、接触性皮膚炎、丹毒、甲状腺機能低下症、血管浮腫、皮膚筋炎、リンパ腫、サルコイドーシスなどがあげられる。掻痒や疼痛がなく表面は常色で持続的であったことから、接触性皮膚炎や丹毒、血管浮腫は否定

表1 2020年以降に本邦で報告された肉芽腫性眼瞼炎の症例

|    | 報告者                | 年齢/性 | 部位               | 肉芽腫<br>(病理像) | 合併症     | 治療                                               | 経過 |
|----|--------------------|------|------------------|--------------|---------|--------------------------------------------------|----|
| 1  | 佐藤ら <sup>3)</sup>  | 59/M | 両上眼瞼             | (+)          | なし      | PSL30mg/日内服                                      | 寛解 |
| 2  | 山田ら <sup>4)</sup>  | 66/M | 右上眼瞼             | (+)          | 酒さ・糖尿病  | トラニラスト内服・ステロイド外用・局注                              | 軽快 |
| 3  | 巖 ら <sup>5)</sup>  | 69/M | 右上眼瞼             | (+)          | なし      | トラニラスト内服                                         | 寛解 |
| 4  | 堀田ら <sup>6)</sup>  | 50/M | 両側上下眼瞼・<br>鼻部・耳介 | (-)          | 右顔面神経麻痺 | トラニラスト, PSL10mg/日内服                              | 再燃 |
| 5  | 真弓ら <sup>7)</sup>  | 50/F | 左上眼瞼             | (+)          | なし      | トラニラスト, PSL15mg/日内服                              | 軽快 |
| 6  | 新井ら <sup>8)</sup>  | 52/M | 左上眼瞼             | (-)          | なし      | トラニラスト内服                                         | 軽快 |
| 7  | 河野ら <sup>9)</sup>  | 54/F | 右上眼瞼             | (+)<br>リンパ管内 | 酒さ      | トラニラスト, ミノマイシン, ロキシシロマイシン内服, ステロイド局注             | 再燃 |
| 8  | 伊崎ら <sup>10)</sup> | 68/M | 左上下眼瞼            | (+)          | 糖尿病     | トラニラスト, レボセチリジン, ドキシサイクリン内服                      | 軽快 |
| 9  | 芦田ら <sup>11)</sup> | 不明   | 両上眼瞼             | (+)          | 酒さ様皮膚炎  | トラニラスト, PSL30mg/日内服                              | 軽快 |
| 10 | 原 ら <sup>12)</sup> | 86/F | 右上眼瞼             | (+)          | なし      | トラニラスト内服                                         | 寛解 |
| 11 | 小川ら <sup>13)</sup> | 54/M | 右上眼瞼             | (+)          | なし      | ステロイド局注                                          | 寛解 |
| 12 | 新井ら <sup>14)</sup> | 50/M | 右上眼瞼             | (+)          | なし      | 少量ステロイド内服→減量手術                                   | 軽快 |
| 13 | 佐藤ら <sup>15)</sup> | 50/M | 両側上眼瞼            | (+)          | なし      | 上眼瞼の部分切除, 皮弁による再建術                               | 軽快 |
| 14 | 徳山ら <sup>16)</sup> | 62/M | 両側上下眼瞼           | (+)          | 糖尿病     | PSL15mg/日, トラニラスト内服                              | 軽快 |
| 15 | 宮本ら <sup>17)</sup> | 39/M | 左上下眼瞼            | (-)          | 不明      | トラニラスト, ロキシシロマイシン, 抗ヒスタミン剤内服                     | 軽快 |
| 16 | 宮本ら <sup>17)</sup> | 40/M | 右上下眼瞼            | (-)          | 不明      | トラニラスト, ロキシシロマイシン, 抗ヒスタミン剤内服                     | 軽快 |
| 17 | 井波ら <sup>18)</sup> | 55/M | 左上眼瞼・左頬部         | (+)          | 不明      | ミノサイクリン・トラニラストで改善なく, mPSL500mg/日×3日間→PSL30mg/日内服 | 再燃 |
| 18 | 古川ら <sup>19)</sup> | 68/F | 両側上眼瞼            | (+)          | なし      | ステロイド局注, トラニラスト内服                                | 軽快 |
| 19 | 自験例                | 55/M | 左上眼瞼             | (+)          | なし      | ステロイド局注                                          | 軽快 |

的で、血液検査から甲状腺機能低下症も否定できた。皮膚筋炎、リンパ腫、サルコイドーシスは病理組織像から鑑別した。

我々が医学中央雑誌で調べ得た限り、2000年以降に報告された肉芽腫性眼瞼炎は自験例を含めて19例であった(表1)<sup>3)~19)</sup>。平均年齢は57歳で、男性に多く、発症部位は片側の眼瞼が多かった。眼瞼に多い理由としては、外的刺激を受けやすく、皮膚が薄く浮腫が生じやすい部位であることが考えられる<sup>9)</sup>。治療はトラニラスト内服、ステロイド局注、ステロイド内服が主体であるが、難治な場合や再発する症例も多い。寛解した症例は19例中4例であった。最終的に外科手術が施行された症例も2例あった<sup>14)・15)</sup>。2例に関しては良好な経過をたどっており、今後有効な治療法の一つとなるかもしれない。

難治性の眼瞼腫脹に遭遇した際には、肉芽腫性眼瞼炎も鑑別疾患の一つとして、皮膚生検を施行する必要がある。組織学的に診断し得た際には、副作用と侵襲性の少ないトラニラスト内服、ステロイド局所注射より治療を開始し、効果が乏しければステロイド内服を、場合によっては外科手術を考慮すべきと考えた。肉芽腫性口唇炎の報告は多いが、肉芽腫性眼瞼炎の報告は少ないため、今後のさらなる病因究明と有効な治療法の確立を期待したい。

## 利益相反

本論文に関して、開示すべき利益相反なし。

## 文 献

- 1) 口腔粘膜疾患 肉芽腫性口唇炎. 玉置邦彦編「最新皮膚科学大系 第17巻付属器・口腔粘膜の疾患」, 東京: 中山書店 2002; p236-8
- 2) 西山茂夫, 富沢尊儀: Blepharitis granulomatosa. 臨床皮泌 1966; 20: 551-54
- 3) 佐藤佐由里, 神人正寿, 土屋知子, 他: 肉芽腫性眼瞼炎の1例. 西日皮 2002; 64: 263
- 4) 山田瑞貴, 大原國章: リンパ節病変を伴った肉

- 芽腫性眼瞼炎の1例. 臨皮 2003; 57: 587-89
- 5) 巖文哉, 澤村大輔, 横田浩一, 他: トラニラストが著効を示した肉芽腫性眼瞼炎の1例. 日皮会誌 2003; 113: 1571
- 6) 堀田健人, 山田朋子, 村田哲, 他: 顔面神経麻痺を伴った肉芽腫性眼瞼炎の1例. 皮膚臨床 2004; 46: 2035-7
- 7) 真弓愛, 松村由美, 宮地良樹, 他: 肉芽腫性眼瞼炎の1例. 臨皮 2009; 63: 191-3
- 8) 新井達, 善家由香理, 百瀬葉子, 他: 肉芽腫性眼瞼炎の1例. 日皮会誌 2011; 121: 749
- 9) 河野美己, 執行あかり, 豊田美都, 他: Intralymphatic Histiocytosisが認められた肉芽腫性眼瞼炎の1例. 西日皮 2015; 77: 349-53
- 10) 伊崎聡志, 篠島由一, 照井正: 肉芽腫性眼瞼炎の1例. 皮膚臨床 2014; 56: 792-3
- 11) 芦田美輪, 西村香織, 田中健嗣: 酒さ様皮膚炎の経過中に発症した肉芽腫性眼瞼炎の1例. 西日皮 2012; 74: 441
- 12) 原寛, 乗杉理, 清水教子, 他: トラニラストが奏功した肉芽腫性眼瞼炎の1例. 日皮会誌 2013; 123: 177
- 13) 小川聡, 酒井大輔, 吉崎仁胤: 肉芽腫性眼瞼炎の1例. 皮膚の科 2013; 12: 48
- 14) 新井達, 赤池智子, 中村仁美, 他: 減量手術が奏効した難治性肉芽腫性眼瞼炎の1例. 日皮会誌 2013; 123: 2281
- 15) 佐藤美聡, 船越建, 斎藤昌孝, 他: 外科的切除によって症状の軽快が得られた肉芽腫性眼瞼炎の1例. 臨皮 2014; 68: 127-31
- 16) 徳山道生, 倉繁裕太, 山田貴彦, 他: 治療に苦慮した肉芽腫性眼瞼炎の1例. 皮膚臨床 2017; 59: 270-1
- 17) 宮本揚子, 神永朋子, 嶋岡弥生, 他: 肉芽腫性眼瞼炎の2例. 日皮会誌 2017; 127: 639
- 18) 井波真矢子, 辻香織, 吉村紫, 他: 肉芽腫性眼瞼炎・頬炎の1例. 日皮会誌 2019; 129: 1206
- 19) 古川貴恵, 中島昭奈, 内田理美, 他: 診断治療に苦慮した肉芽腫性眼瞼炎の1例. 日皮会誌 2020; 130: 88

---

## A case of granulomatous blepharitis

Riho KAGEJI, Yasutoshi HIDA, Hiromichi KAWASHIMA

Division of Dermatology, Tokushima Red Cross Hospital

Herein, we report the case of a 55-year-old Japanese man who developed left eyelid swelling one month before his visit. Although he visited a nearby dermatology clinic, the swelling did not improve, and he was referred to our department. At the first visit, the upper left eyelid had a normal surface color, but was hemispherically raised. Magnetic resonance imaging of the orbit showed swelling of the upper left eyelid, with a hyperintense area on Short Inversion Time Inversion Recovery (STIR) sequence. Oral administration of an antihistamine (bepotastine besilate) and doxycycline did not improve his condition. Histopathological examination revealed edematous changes in the entire dermis and small noncaseous granulomas. Based on the above findings, the patient was diagnosed with granulomatous blepharitis, and treatment with local steroid injection and oral tranilast was initiated. However, tranilast was discontinued because of side effects. The patient's symptoms improved with one local steroid injection; however, the condition relapsed during a 2-month follow-up period. Granulomatous blepharitis is a rare disease; however, if swelling of the eyelids is observed, a thorough medical examination is necessary to differentially diagnose the disease. We report this case with additional literature review.

Key words: Granulomatous blepharitis, local steroid injection, tranilast

Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal 26 : 86-90, 2021

---