

堀 昭夫

小松島赤十字病院歯科口腔外科

A case of eosinophilic granuloma of the soft tissue

Akio HORI

Division of Dental, Oral and Maxillofacial Surgery, Komatushima Red Cross Hospital

要 旨

軟部好酸球肉芽腫（木村氏病）は、病理組織学的に、好酸球の浸潤と多数のリンパ濾胞形成を特徴とする疾患で、臨床検査所見では、末梢血中の好酸球数、Ig-E 値の上昇が特徴とされている。その原因は未だ不明であるが。近年、I型アレルギーに関連していると考えられるようになった。また、その治療法は、未だ確立されておらず、複数の治療法を組み合わせながら、血中の好酸球数やIg-E 値の推移を観察するという方法が行われている。

今回、本症の1例を経験したので、その概要を文献的考察を加えて報告する。

キーワード：軟部好酸球肉芽腫、顎下部、木村氏病

緒 言

軟部好酸球肉芽腫（木村氏病）は、全身の皮下軟部組織、とくに耳下腺部、顎下部などの頭頸部に好発し、無痛性の腫瘍を特徴とする比較的まれな疾患である。

今回、左側顎下部に発生した軟部好酸球肉芽腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

患 者：56歳 男性。

初 診：平成4年4月8日。

主 訴：左側顎下部腫脹。

家 族 歴：特記事項なし。

既往歴：僧帽弁閉鎖不全症にて平成3年12月、弁置換術を施行し、以来、抗凝固剤（ワーファリン）を内服していた。

現病歴：2、3日前に左側顎下部の腫脹に気付き、当科を受診した。

現 症：体格、栄養は中等度で、全身状態は

良好であった。顔貌は左右非対称で、左側顎下部に径40mm、可動性、弾性硬の腫瘍を触知した。腫瘍は境界明瞭で表面皮膚との癒着はなく、自発痛、圧痛もみられなかった（図1、2）。また、開口障害もなく、口腔内所見では、左側ワルトン管よりの唾液流出は正常で、その他、口腔粘膜、歯牙、顎骨に炎症所見は認められなかった。

臨床検査所見：血液検査では、血液像で好酸球



図1 初診時顔貌(正 貌) 図2 初診時顔貌(左側貌)

表1 初診時臨床検査成績

RBC	458×10 ⁴ /μl	TP	8.6g/dl
Hgb	14.5g/dl	TCho	159mg/dl
Hc	41.5%	TBil	0.9mg/dl
WBC	6010/μl	GOT	48 IU
Eosino	7.5%	GPT	41 IU
Baso	1.5%	ALP	7.1 IU
Seg	46.0%	r - GTP	24 IU
Lymph	36.3%	LDH	371 IU
Mono	8.7%	BUN	17mg/dl
PLTS	16.1×10 ⁴ /μl	Cre	0.9mg/dl

が7.5%であった。その他、異常所見は認めなかった(表1)。

エックス線所見：CT所見では左側顎下部の顎下腺前方部に、境界明瞭な陰影を認めた(図3)。エコーグラムでは、腫瘤は境界明瞭でほぼ球形を呈している所見が得られた(図4)。⁶⁷Gaシンチグラムでは、左側顎下部に、孤立性の強い集積が認められたが、他の部位への集積は見られなかった(図5)。

臨床診断名：左側顎下部腫瘍。

処置および経過：平成4年5月8日当科入院。循環器科、主治医と相談のうえ、翌9日よりワーファリンを休薬し、5月12日全身麻酔下に、腫瘤摘出手術を行った。手術所見で、腫瘤は顎下腺の下、前方部に位置し、顎下腺との関連は認められず、剝離は容易で、一塊としての全摘出が可能であった(図6)。摘出体は35×33×30mmのほぼ球形を呈し、硬さは弾性硬、その剖面は、充実性で、黄白色を呈していた(図7)。術後経過は良好で、5月22日当科退院となった。以後、外来で経過観察を行ったが臨床的に再発もなく、経過良好で、臨床検査でも好酸球数、Ig-E値の異常は認めら

表2 好酸球数、Ig-E値の推移

	93・3・10	11・12	94・5・27	95・5・31
好酸球数	9.9	5.3	6.1	6.4%
Ig-E	187	188	174	173IU/m ²

れていない(表2)。

病理組織所見：リンパ濾胞の増生と、リンパ濾胞の周囲に、多数の好酸球と新生毛細血管が認められた。(図8)。

病理組織診断名：好酸球性リンパ節炎(軟部好酸球肉芽腫)。

考 察

軟部好酸球肉芽腫は、1909年片山²⁾が「ミクリッツ氏病の1例」として発表し、これが本邦で最初の報告とされている。その後、1948年木村ら³⁾は耳下腺、頸部、下顎部に多発したリンパ組織増生を伴う異常肉芽について報告し、その組織学的特徴を示した。

また1959年飯塚⁴⁾は本症の臨床的特徴や組織像から、世界的に明確な記載のないこの疾患を、ひとつの独立した疾患であるとして、「木村氏病」と呼ぶことを提唱した。一方、1962年綿貫ら⁵⁾は、「軟部好酸球肉芽腫」という名称を提唱した。その後、各方面から多数の症例が報告されているが、その名称はさまざまで、好酸球性リンパ節症^{6) 7)}、好エオジン球性リンパ肉芽腫症⁸⁾、好酸球性濾胞増殖性症候群⁹⁾、好酸球性リンパ濾胞増殖症^{10) 11)}などの報告があるが、最近では、木村氏病あるいは軟部好酸球肉芽腫を用いた報告が多い。

発症年齢は10代、20代の若年者に多く、また男性に圧倒的に多いとされている。本症例は、男性ではあったが、56歳とやや高齢であった。

発症部位は、耳下腺部、頸部、顎下部、頬部などの頭頸部が好発部位とされている。

腫瘤の性状は、無痛性腫瘤が特徴とされ、大きさは、拇指頭大から鶏卵大のものが多く、なかには人手拳大の症例も報告されている¹²⁾。硬さは弾性軟あるいは弾性硬の報告が多い。また、局所搔痒感^{5) 13)}や皮膚の色素沈着^{12) 13)}がみられた症例も散見される。

臨床検査所見では、末梢血における好酸球数、Ig-E値の上昇が特徴とされているが、好酸球増多のみみられない症例も報告されている^{5) 14)}。本症例も7.5%と著名な上昇は認められなかった。

原因としては、アレルギー説、自己免

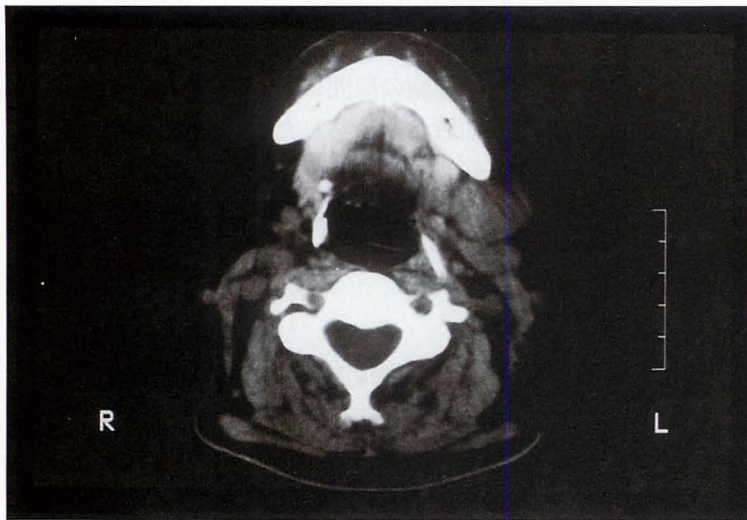


図3 CT所見

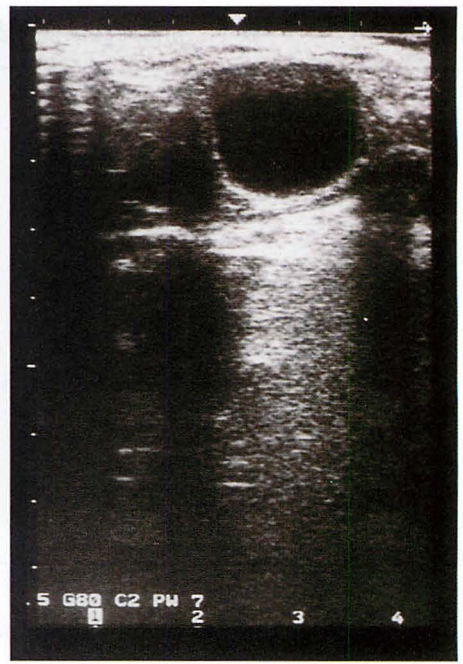


図4 腫留部エコーグラム

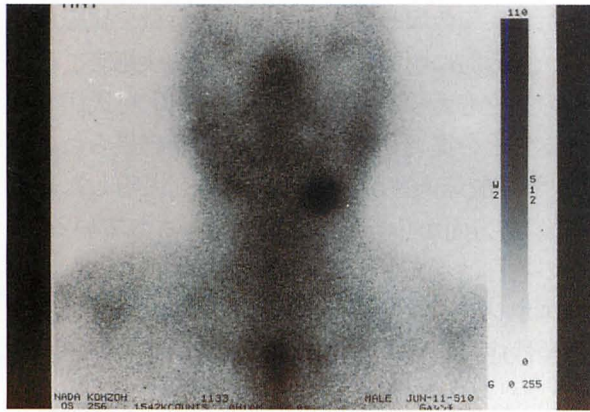


図5 ^{67}Ga シンチグラム

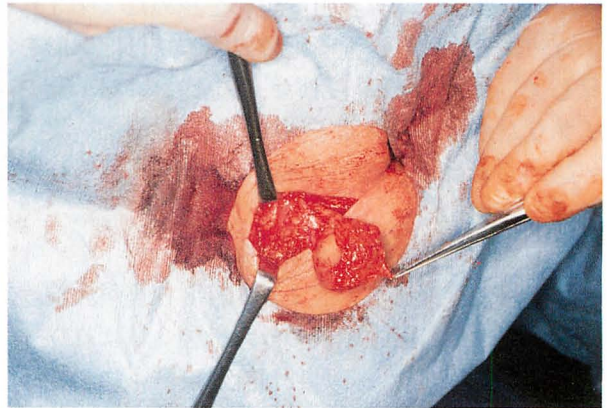


図6 手術時所見



図7 摘出体の剖面

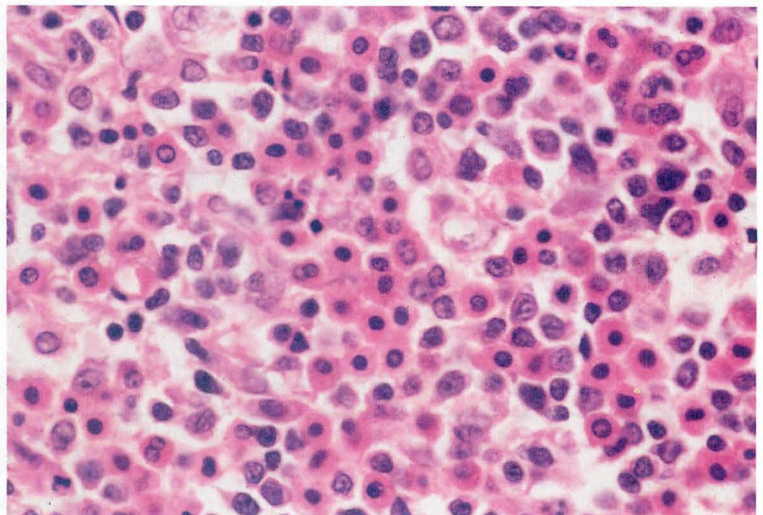


図8 病理組織像

疫疾患、内分泌障害説など諸説が唱えられているが、現在も本態は不明である。近年、アレルギー説を有力とする報告が多く、その理由として、Ig-E 値の異常な高値が認められること、しばしばカンジダの皮内反応が陽性になること、またカンジダによる皮内、腫瘍内減感作療法で腫瘍の縮小、好酸球数の減少が認められたこと、病変部に肥満細胞が多数みられた症例があることなどが挙げられている。尚、本症例では、抗凝固剤を内服していたが、本症との因果関係は不明で、文献的にも、類似症例は認められない。

本症の治療法としては、外科的治療法、放射線療法、副腎皮質ホルモン、非ステロイド系消炎剤などの薬物療法、抗アレルギー療法などが、単独または併用で試みられており、治療法が確立されていないのが現状である。

外科的治療法は、本症の皮下腫瘍の境界が判然としない場合、摘出後に再発する可能性が高いこと、頭頸部が好発部位であるため、審美的な問題があること、顔面神経損傷の可能性があることなどが指摘されている。したがって比較的限局し、周囲リンパ節も含めた全摘出が可能であれば外科的治療法は有用であると考えられる。

放射線療法は、10Gy で腫瘍の縮小が認められた¹⁵⁾とする報告もあるが、一般的には40Gy 前後の照射が必要とする報告が多い^{16) 17)}。しかし、本症が悪性腫瘍でないこと、また若年者に好発することから、線量に対しては慎重な対処が望まれる。

副腎皮質ホルモン、非ステロイド系消炎剤などの薬物療法は広く用いられ、著効を示す症例も多いが、一時的には有効であっても中止すると再発した症例^{5) 13)}や、長期連用による副作用の問題などから、単独では不十分で、他の治療法と併用されることが多い。

抗アレルギー療法として、カンジダの皮内反応陽性患者に対して、カンジダの皮内および腫瘍内減感作療法を行い、腫瘍の著明な縮小を認めたという報告もある¹⁸⁾。しかし、カンジダ皮内反応陰性例が存在することや、逆に抗アレルギー療法によって腫瘍が増大したとする症例も報告されている¹⁹⁾。

本症例では、腫瘍が単発性で、顎下部に限局していたこと、手術所見において腫瘍が境界明瞭で、

周囲組織との癒着がなく全摘出が可能であったことより、結果的には外科的治療法単独となった。しかし経過によっては、他の治療法との併用も考慮していた。術後3年以上経過した現在、幸い、再発を疑う所見は認められないが、今後も経過観察が必要であると考えられる。

結 語

左側顎下部に発生した軟部好酸球肉芽腫の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第22回日本口腔外科学会中国・四国地方会（平成5年4月17日、倉敷市）において発表した。

文 献

- 1) 石川梧朗：口腔病理学Ⅱ．改訂版：168-169 末永書店，京都，1982
- 2) 片山久寿頼：涙腺および唾液腺の対称性腫脹，即ちミクリッツ氏病の一例．日外会誌 9：411-423，1909
- 3) 木村哲二，吉村三郎，石川栄世，他：淋巴組織増生を伴う異常肉芽に就て．日病会誌 37：179-180，1948
- 4) 飯塚 栄：好エオジン球性リンパ腺炎およびリンパ肉芽腫症—木村氏病の提唱— 日大医誌18：900-908，1959
- 5) 綿貫 喆，栗根康行：軟部組織の好酸球肉芽腫について—12例の経験と文献的考察—．臨床外科 17：5-17，1962
- 6) 布施為松，西田 匡，作 正雄，他：好酸球性リンパ節症（木村氏病）について．信州医誌 12：310-316，1963
- 7) 森永武志，吉崎 正，石原義恕，他：好酸球性リンパ節症（木村氏病）について．日本臨床 23：2001-2011，1965
- 8) 野原 望，月野木清徳：好エオジン球性リンパ肉芽腫症の1例．皮と泌 25：32-38，1963
- 9) 藤田恵一：好酸球性濾胞増殖性症候群の一例．日皮会誌 74：535-536，1964
- 10) 川田陽弘，高橋 久，安西 喬：皮膚における好酸球性リンパ濾胞増殖症；従来木村氏

- 病、好エオジン球性リンパ肉芽腫症、軟部（組織の）好酸球（性）肉芽腫と称された疾患について. 日皮会誌 76 : 117-134, 1966
- 11) 後藤允哉, 上野賢一 : 皮膚好酸球性リンパ濾胞増殖症 (いわゆる木村氏病). 皮膚臨床 16 : 377-380, 1974
 - 12) 粕谷幸生, 松田匡房, 藤内 祝, 他 : 両側耳下腺部に発生した巨大な軟部好酸球肉芽腫の 1 例. 口科誌 38 : 739-744, 1989
 - 13) 石川浩一, 上垣恵二, 菱本久美郎, 他 : 軟部好酸球肉芽腫. 日本臨床 22 : 2400-2410, 1964
 - 14) 吉田与一, 森下正明, 高田和彰, 他 : 頬粘膜に発生した好酸球肉芽腫の一例. 日口外誌 18 : 682, 1972
 - 15) 北原 哲, 戸田行雄, 中島久美, 他 : 耳下腺部軟部好酸球肉芽腫の治療法に対する 1 考察 - 病理組織学的所見からみた術前照射の意義 -. 耳喉 55 : 361-365, 1983
 - 16) 黒川久枝, 北畠 隆, 黒川茂樹, 他 : 軟部好酸球肉芽腫 (いわゆる木村氏病) の放射線治療. 癌の臨床 18 : 712-716, 1972
 - 17) 辻井博彦, 入江五朗 : 軟部好酸球肉芽腫の治療 - 主に放射線治療の意義について -. 癌の臨床 23 : 881-886, 1977
 - 18) 佐々木好久, 山田 登, 久松建一 : 軟部好酸球肉芽腫とアレルギー. 耳喉 43 : 195-200, 1971
 - 19) 坂元晴彦, 朝倉昭人 : いわゆる軟部好酸球肉芽腫の 2 症例. 日口外誌 25 : 378-383, 1979
 - 20) 河野信彦 : いわゆる軟部好酸球肉芽腫の 1 例 - 類似疾患である angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia との比較検討 -. 日口外誌 27 : 445-453, 1981
 - 21) 小林仁和, 宮国泰明, 涌谷忠雄 : 軟部好酸球肉芽腫の一症例. 耳鼻と臨床 28 : 1108-1113, 1982
 - 22) 貞森平樹, 長畠駿一郎, 高木 慎, 他 : 頬部、顎下部に発生した軟部好酸球肉芽腫の 1 例. 日口外誌 33 : 635-638, 1987
 - 23) 松崎英雄, 林 尚徳, 米津博文, 他 : 軟部好酸球肉芽腫の 4 例. 日口外誌 36 : 2130-2136, 1990