

# 琉球大学学術リポジトリ

## [原著]両側性耳下腺部軟部好酸球肉芽腫を疑われた症例の治療経験

メタデータ	言語: 出版者: 琉球大学保健学部 公開日: 2014-07-18 キーワード (Ja): キーワード (En): 作成者: 又吉, 重光, 饒波, 正吉, 野田, 寛, MATAYOSHI, Shigemitsu, NOHA, Seikichi, NODA, Yutaka メールアドレス: 所属:
URL	<a href="http://hdl.handle.net/20.500.12000/0002016456">http://hdl.handle.net/20.500.12000/0002016456</a>

## 両側性耳下腺部軟部好酸球肉芽腫を疑われた症例の治療経験

琉球大学保健学部附属病院耳鼻咽喉科

又吉重光, 饒波正吉, 野田 寛

### はじめに

好酸球肉芽腫については, 1929年 Finzi<sup>1)</sup> が骨好酸球肉芽腫について最初に記載し, さらに Nauta et Gadrat<sup>2)</sup> が皮膚好酸球肉芽腫について報告して以来, 消化管, 肺, 尿路などに組織学的に類似の好酸球浸潤を伴った肉芽腫として数多くの報告がみられる。これらは Farber<sup>3)</sup> の意見が大方の統一した見解となっているように, Hand-Schüller-Christian 病および Letterer-Siwe 病と同一疾患とする, いわゆる histiocytosis X の範疇に属するものと考えられている。

しかし, 皮下の軟部組織に単発ないし多発性に腫瘤を形成し, 末梢血中に好酸球増多をみる軟部好酸球肉芽腫は, 特異な病理組織所見と臨床所見から, 好酸球肉芽腫とは区別される独立疾患単位と考えられている。

われわれは最近, 両側の耳下腺部に発生した軟部好酸球肉芽腫の疑われる症例を経験したので報告する。

### 症 例

症 例: 41才, 男性

主 訴: 両側性耳下腺部腫脹

現病歴: 昭和52年右耳下腺部の腫脹に気づき, 腫瘤は大きくなったり, 小さくなったりしていたが, 昭和53年左耳前部も腫脹し, 昭和54年2月15日当科を受診す。

理学的所見: 両側耳下腺部に右側 5×4 cm, 左側 3×2 cm の弾性硬の腫瘤が認められ, 深部との癒着はあったが, 皮膚との癒着は認められなかった。表面は平滑で, 圧痛は軽度に認められた。頸部リンパ節は両側ともに融知せず, 全身状態は良好であった。

初診時臨床検査所見: 白血球数  $13.3 \times 10^3 / \text{mm}^3$ ,

好酸球数 3,927, 好酸球分画 28%, 赤沈値 24/62 mm, 赤血球数, 血色素, ヘマトクリット値などには異常は認められなかった。肝機能, 尿所見に異常なく, CRP(-), RA(-), LE(-) であり, 糞便検査でも虫卵は発見されなかった。血清免疫グロブリンは, IgG 1,560 mg/dl, IgA 220 mg/dl, IgM 140 mg/dl, IgE 4,000 IU/ml 以上であった。

アレルギー皮内反応では, 真菌類を中心に行われたが, 陽性を示す抗原は認められず, わずかにパスポートが発赤  $13 \times 16 \text{ mm}$ , 膨疹  $5 \times 6 \text{ mm}$  を示すのみであった。

右側の耳下腺造影では, 分岐管がやや狭小化され, 腺体は均一な淡い陰影を呈しているが, 腫瘍陰影は認められなかった (Fig. 1)。

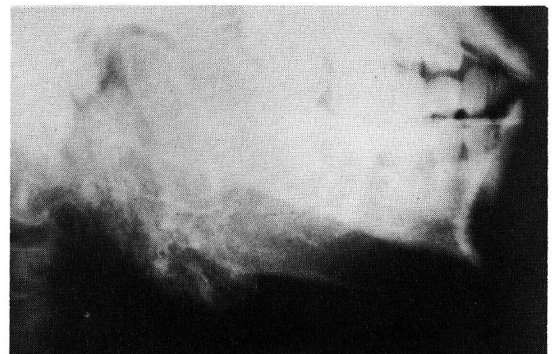


Fig. 1. Sialography of the right parotid gland

胸部X線写真に異常は認められなかった。

病理組織学的所見: 右耳下腺部よりの試験切除標本には, 好酸球浸潤が高度に認められる。胚中心の形成が認められないので典型的ではないが, 軟部好酸球肉芽腫と思われる (Fig. 2)。

治療および経過: 軟部好酸球肉芽腫を考え, 3月15日から<sup>60</sup>Co 照射 (1,600 rad) およびステロイド療法を開始し, その間 5-Fu 600 mg/日を

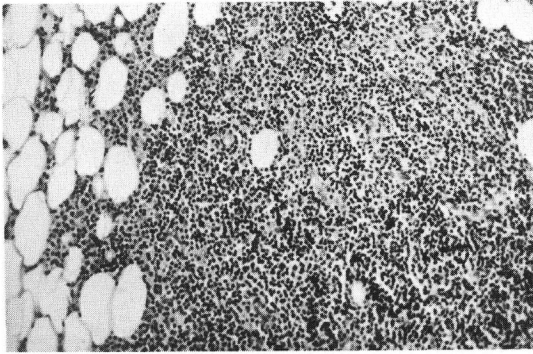


Fig. 2. Histological appearance of the right parotid gland

投与した。その結果、好酸球数、好酸球分画の著明な改善を認め、赤沈値も改善を示し、腫瘍は消失したが、血清 IgE 値は変化を示さなかった (Table 1)。

考 按

軟部好酸球肉芽腫については、1958年木村<sup>4)</sup>が eosinophilic lymphoid granuloma として軟部腫瘍2例を報告して以来、主として本邦において数多くの報告が見られている。骨および皮膚の好酸球肉芽腫との差異は、綿貫ら<sup>5)</sup>が指摘して

いるように、好酸球肉芽腫は inflammatory histiocytosis とされるほどに histiocyte の関与が大きいのに対して、本症はリンパ球浸潤が著明なことで、リンパ小節の増生の大きいことが大きな相異点であるとされている。

本症を統計的にみると、まず性別では男性に約90%と多く、年齢別では、10才代24%、20才代33%、30才代18%にみられるという<sup>6)</sup>。初発年齢は10才未満が17%で、20才までに52%の患者が発病しており<sup>6)</sup>、このことから本症は幼少期に比較的多く発病し、10~30才代の男性に多い疾患ということになる。

発病より来診までの期間をみると、1年未満で来診している例は11.3%にすぎず、過半数の患者は発病後4年以上経過して来院しており、なかでも10年以上放置していた例が17%もある<sup>6)</sup>。このことは、本症の進行が緩徐で、比較的愁訴に乏しく、全身状態が侵されず、慢性の経過をたどることを物語っている。

腫瘍形成の部位については、耳下腺部、顎下腺部、頬部、涙腺部など顔面に発生する率が高く(48%)、なかでも耳下腺部は24.7%と高頻度である<sup>6)</sup>。病巣が両側性のものが44.3%も存在する<sup>6)</sup>。腫瘍を被う皮膚にも変化があり、浮腫状、オレンジ皮様外観などと表現され、色素沈着、搔

Table 1. Laboratory findings of the case

	15. Febr. 1979	2. April 1979	26. April 1979
Count of eosinophils ( /mm <sup>3</sup> )	3,927	429	77
Eosinophils (%)	28	4	2
Erythrocyte sedimentation rate (mm)	29 / 62	14 / 35	13 / 33
Size of the tumor at the right side (cm <sup>3</sup> )	5 × 4 × 1	3 × 3 × 0.5	0 × 0 × 0
Serum IgE level (IU / ml)	4,000 ↑	4,000 ↑	4,000 ↑

痒感を伴う例もみられる<sup>5) 6)</sup>。腫瘤の大きさは小指頭大から手挙大におよび、皮膚との癒着は発病より期間を経るにしたがい癒着が増強する傾向にある<sup>6)</sup>

臨床検査所見では、肝、腎機能に異常なく、頭蓋などのX線検査にも特異な変化はみられない。最も特徴的な変化は末梢血中の白血球増多と好酸球増多であり、白血球数9,000以上の症例は47.6%あり、好酸球分画が10%以上ある症例は83%に達する<sup>6)</sup>。CRP, RA, ASLOなどの検査データ値はいずれも正常範囲内で、アレルギー皮内反応ではカンジダ陽性例が散見されることもあるが、陰性例も存在し、一定の傾向はないといわれている<sup>6) 7)</sup>。免疫グロブリンIgE値は2,000 IU/ml以上を示すものは70%もあり<sup>8) 9)</sup>、本症の発生機序としてtype 1のアレルギーが関与しているのではないかと推察されている。

病理組織学的には、胚中心を伴うリンパ滲胞が出現し、そこには強い好酸球とリンパ球の浸潤が必ず見られる。滲胞間には結合織の増殖、線維化、毛細血管の拡張、壊死などがあり、ここにも好酸球とリンパ球の遊出がみられるという<sup>6) 10)</sup>。神田<sup>11)</sup>は電顕により変性好酸球に伴なってCharcot-Leiden結晶を観察している。

治療としては、手術的全摘出の方法<sup>5)</sup>もあるが、本症の好発部位が顔面であり、多発性であり、明らかな被膜がなく、悪性腫瘍でもないということとを考慮すると、積極的な摘出は限られてくる<sup>6)</sup>。ステロイド療法と放射線照射との併用が望ましいといわれており、<sup>60</sup>Co 4,000～4,500 rad 必要との報告もあるが、<sup>60</sup>Co 2,000 rad を超える線量は十分に腫瘍の縮小、消失をきたし、再発をきたさない線量だといわれている<sup>6) 13)</sup>。

転帰としては、治療中止後腫瘤の再発、血液所見の悪化が徐々にみられることが多く、しかし、悪性化したり、また死亡したという報告はない<sup>14)</sup>。

当症例においては、病理組織学的に定型的な軟部好酸球肉芽腫症を示していないが、当症と考え<sup>60</sup>Co照射およびステロイド療法を行うことにより腫瘤は消失し、好酸球数、好酸球分画ともに著明に改善せしめ得たが、血清IgE値は未だ改善を示していないので、さらに嚴重な経過観察が必要である。

## ま と め

当科にて経験した41才、男性の両側性耳下腺部軟部好酸球肉芽腫を疑われた一症例を報告した。当症例はステロイド療法、<sup>60</sup>Co照射の併用療法により、好酸球数、好酸球分画の著明な改善を示し、腫瘤は消失したが、血清IgE値の変化は認められなかった。

本論文の要旨は、第9回日本耳鼻咽喉科学会沖縄県地方部会学術講演会において発表した。

## 参 考 文 献

- 1) Finzi, O. : Mieloma con prevarlenza dellé cellule eosinofile, circoscritto all' osso frontale in un giovane die 15 anne. *Universa med.* 91, 239-247, 1929.
- 2) Nauta, A., Gadrat, J. : Sur un granulome eosinophilique cutane. *Bull. Soc. Franc. de dermat. et syph.* 44, 1470-1478, 1937.
- 3) Farber, S. : The nature of "solitary or eosinophilic granuloma". *Am. J. Pathol.* 17, 625-629, 1941.
- 4) 木村哲二 : 淋巴組織増生を伴う異常肉芽について。日病理会誌 37, 179～180, 1958.
- 5) 綿貫 詰, 栗根康行 : 軟部組織の好酸球肉芽腫について。臨床外科 17, 5～17, 1962.
- 6) 富樫紀彦, 宮崎代介, 落合洋一郎, 志賀 敦, 佐藤武男 : 軟部好酸球肉芽腫の2症例。耳鼻咽喉科臨床 69, 972～933, 1976.
- 7) 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。耳鼻咽喉科 43, 195～200, 1971.
- 8) 山口宗彦, 石川 哮, 藤田洋右, 北村 武 : 軟部好酸球肉芽腫症の臨床。耳鼻咽喉科 45, 639～645, 1973.
- 9) 形浦昭克, 木村徹男 : 軟部好酸球肉芽腫の1症例。耳鼻咽喉科 18, 179～181, 1975.
- 10) 飯塚 英 : 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.
- 11) 神田 敬, 北村 武 : 耳下腺部に原発した軟

部好酸球肉芽腫の電子顕微鏡的観察．耳鼻咽喉科 42, 289～297, 1970.

- 12) 黒川久枝, 北島 隆, 黒川茂樹, 寺田一郎, 平沢喜久雄：軟部好酸球肉芽腫（いわゆる木村病）の放射線治療, 癌の臨床 18, 712～716, 1972.
- 13) 塚本憲甫, 渡辺哲敏：エオジン好性リンパ腺炎及び類似症候群〔所謂 eosinophilic granuloma（木村）〕の放射線治療の経験．癌の臨床 5, 108～113, 1959.
- 14) 石川浩一, 上垣恵二, 菱本久美郎：軟部好酸球肉芽腫．日本臨床 22, 126～136, 1964.

## Abstract

## A CASE OF SUSPECTED EOSINOPHILIC GRANULOMA OF THE SOFT TISSUE IN THE BILATERAL PAROTID REGIONS

Shigemitsu MATAYOSHI, Seikichi NOHA and Yutaka NODA

Department of Otorhinolaryngology, College of Health Sciences, University of the Ryukyus

There are comparatively many reports of eosinophilic granuloma of the soft tissue mainly in Japan, since Kimura called it an eosinophilic lymphoid granuloma in 1958. We experienced recently a suspected case of it in the bilateral parotid regions.

The case was a 41-year-old male. His chief complaint was the swelling of the bilateral parotid regions that occurred first at the right side two years ago and then secondly at the left side one year after that. The laboratory findings consisted of leucocytes  $13.3 \times 10^3 / \text{mm}^3$  with 28% of eosinophils, and the serum IgE level was over 4,000 IU / ml.

With the treatment of the irradiation ( $^{60}\text{Co}$ , 1,600 rad) and steroid for about two months, the count of eosinophils and also the size of the tumors were markedly improved, however the serum IgE level was not improved.