

頬部に発症した Rhinoscleroma と 思われる 1 例

川崎医科大学 口腔外科学教室

瀬上 夏樹, 細田 超, 小若 純久
畑 毅, 福田 道男

同 人体病理学教室 II

広川 満良, 真鍋 俊明

(昭和60年6月5日受付)

A Case Considered to be Rhinoscleroma Occurring on the Cheek

Natsuki Segami, Masaru Hosoda
Sumihisa Kowaka, Tsuyoshi Hata
and Michio Fukuda

Department of Oral Surgery
Kawasaki Medical School

Mitsuyoshi Hirokawa and Toshiaki Manabe

Department of Human Pathology II
Kawasaki Medical School

(Accepted on June 5, 1985)

頬部の無痛性腫脹を主訴に来院し、病理組織学的に **rhinoscleroma** と考えられた 1 例を報告した。症例は 51 歳、男性で 8 年前に出現した右頬部の腫脹が徐々に増大し、来院時約 5×4 cm の弾性硬の腫瘤を認めた。X線診査では右上顎洞前壁の一部骨吸収と洞周囲骨壁の肥厚像を呈した。臨床的に良性腫瘍を疑って切除したところ、病理組織学的には形質細胞の浸潤を中心とする肉芽腫性病変で、Mikulicz 細胞、Russell 小体が散在してみられる定型的な **rhinoscleroma** の組織像を示した。

A case considered to be rhinoscleroma is reported. A 51-year-old man visited our clinic with a painless buccal mass which increased in size slowly over 8 years and measured on admission 5×4 cm at its greatest dimension. Radiographic examination disclosed a partially resorbed area in the frontal wall of the right antrum with a hypertrophic reaction of the surrounding bone. A clinically benign tumor was suspected, and resection of the mass along with a right sinusectomy

was performed. Microscopically, the resected specimen revealed the typical appearance of rhinoscleroma, namely a granulomatous inflammation with marked plasmocytic infiltration, Mikulicz cells, and Russell bodies.

Key Words ① Rhinoscleroma ② Buccal mass

はじめに

rhinoscleroma は鼻腔や上気道に発生する慢性の肉芽腫性病変で、南ヨーロッパ、中南米に多発するといわれるが、¹⁾ 本邦では数例の報告をみるに過ぎず、^{2)~6)} 極めて稀な疾患である。今回、著者らは頬部腫瘍を主症状とし、病理組織学的に rhinoscleroma と考えられた一例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患者：51歳，男性，縫製業

初診：昭和56年10月14日

主訴：右頬部の腫瘍形成

現病歴：昭和48年に某歯科で、右上顎第一大臼歯の抜歯処置を受けたが、その後徐々に右頬部の無痛性腫脹を認め、腫瘍を形成した。昭和56年9月、某外科を受診し生検を受けたが診断確定せず、精査目的で当科を紹介された。

既往歴：39歳の時、腸閉塞にて手術

家族歴：特記すべき事項なし

現症：全身的には異常所見は認めなかった。局所所見では、右頬部皮下に皮膚と癒着した約5×4 cm 弾性硬の腫瘍を認めた(Fig. 1)。腫瘍は口腔内の右上顎第一大臼歯部歯肉まで達し、この部では腫瘍との癒着がみられた。また腫瘍表面には他医での生検部に一致して小潰瘍が存在したが、その他に排膿や鼻症状は認めなかった。単純X線所見では、右上顎洞領域のびまん性不透過像を認めた。CT 所見では腫瘍はほぼ均一な density を有し、腫瘍と接した右上顎洞前壁には一部欠損像を、また洞周囲骨の肥厚像を呈した(Fig. 2)。

一般検査所見：末梢血白血球数8,900/ μ l と軽度の増多および血沈にて70 mm/h, 96 mm/2h と亢進を認めた。その他の検査では異常所

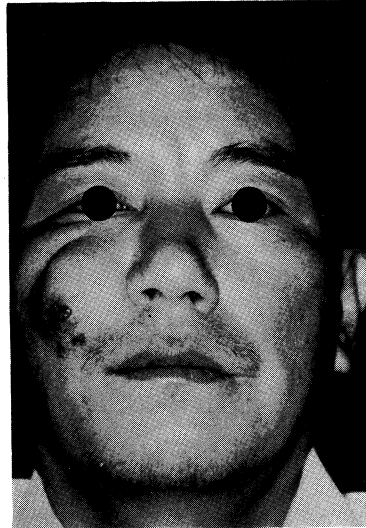


Fig. 1. Subcutaneous mass of the right cheek.



Fig. 2. CT reveals a resorption area in the frontal wall of the right antrum in contact with the mass and hypertrophic area of the surrounding bone.

見はなかった。

臨床経過

外来にて口腔内より生検を行った結果、xanthogranuloma の病理診断を得た。約10日



Fig. 3. Protrusion of a granulomatous mass from the buccal skin.

間抗生剤を経口投与したが腫瘍は縮小せず、むしろ増大傾向を示した (**Fig. 3**)。このため入院の上、全麻下で頬部皮膚を含めた腫瘍切除および右上顎洞根治を施行した。腫瘍は被膜に包まれ、一部上顎洞前壁を破り、また鼻腔内へ進展して中鼻甲介と癒着して中鼻道内には腫瘍被膜と連続した瘢痕組織を認め、これらを一塊として摘出した。頬部皮膚欠損部は局所皮弁を用いて閉鎖した。

摘出標本は 6×6×5 cm、重さ 44 g、充実性で薄い被膜に包まれていた (**Fig. 4**)。

病理組織学的所見：形質細胞、リンパ球を中



Fig. 4. Resected specimen shows a yellow mass circumscribed by a thin connective tissue.

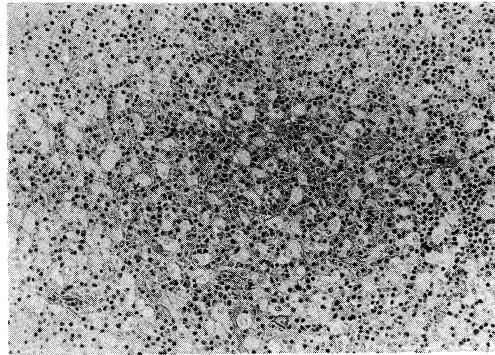


Fig. 5. Histopathological micrograph shows a granulation tissue consist of chronic inflammatory cells infiltration and foamy histiocytes (H-E stain, ×150).

心とする慢性炎症細胞浸潤と、細胞質に網状の空隙を有する多数の組織球 (泡沫細胞) からなる肉芽組織の所見を呈した (**Fig. 5**)。PAS, Giemsa 染色では、泡沫細胞の空隙内には桿菌様構造物を認め、Mikulicz 細胞と考えられた (**Fig. 6**)。また形質細胞には Russel body が存在した (**Fig. 7**)。この結果、病理組織学的には xanthogranuloma で rhinoscleroma に一致する所見であった。なおホルマリン固定標本を電顕的に検索し、病原菌の同定を試みたが明らかな菌体成分を見つけることはできなかった。

現在術後約 3 年半で経過観察中であるが再発を認めていない。

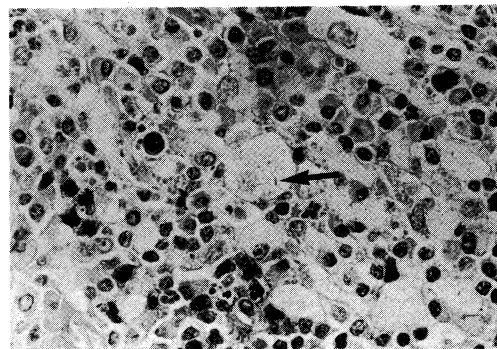


Fig. 6. Bacilli-like substance exists in the foamy histiocyte cytoplasm (arrow) (Giemsa stain, ×600).

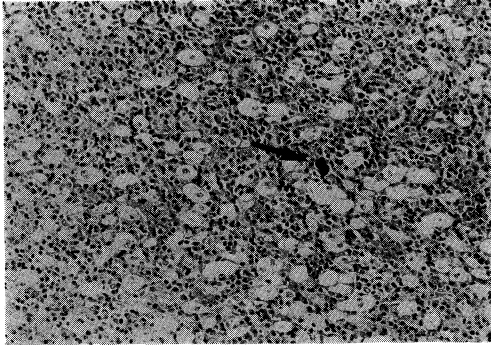


Fig. 7. Eosinophilic Russell bodies are scattered in the granulation tissue (arrow) (H-E stain, $\times 150$).

考 案

rhinoscleroma (鼻硬化腫) は、上気道に発生する慢性の肉芽腫性感染症で、1870年に von Hebra によって最初に報告されたといわれている。^{7),8)} 以来世界各地約 68 カ国で発症が確認されているが、特に中南米、南ヨーロッパ、北アフリカなどで多発し、発生には特異的に地域隔差がみられる。⁹⁾ 本邦においては、葛目,³⁾ 志水,⁴⁾ 山川,⁵⁾ らが病理組織学的に本症と診断された各 1 例を、また最近、藤谷ら⁶⁾ は鼻腔内に発症し、原因菌を同定して細菌学的、組織学的に確定診断の得られた 1 例を報告している。文献的に渉猟した範囲では、上記の 4 例以外に日本人に発症した報告は見出し得なかった。

本症は主に鼻腔、咽頭、喉頭、気管などに発生するが、上唇などの皮膚での発症例もみられている。また臨床的には ① 肥厚性鼻炎期、② 外向性の肉芽腫性増殖期、③ 癬痕形成期という 3 つの stage を進行する。¹⁰⁾ 自験例は肉芽腫性増殖期に相当すると考えられるが、この stage では臨床的に腫瘍を疑わせるような急速な増殖を示すことがあるといわれる。¹¹⁾

病理組織学的には、形質細胞の浸潤を主体とする肉芽腫性病変で、これらの中に淡い網状ないし泡沫状の胞体をもつ、いわゆる Mikulicz 細胞や形質細胞内の eosinophilic globule つまり Russel body が存在することが特徴とされ、Mikulicz 細胞と Frisch 菌 (*Klebsiella*

rhinoscleromatis) を証明すれば診断は確定するといわれる。¹⁾ 鑑別診断として、らい腫、梅毒、リンパ肉芽腫、リーシュマニア、ヒストプラズマ症などが挙げられる。これらの疾患も同様の組織像を呈するが、臨床所見や特殊染色法による病理所見などから鑑別可能である。本症の治療法は一般的に抗生剤投与 (streptomycin, tetracycline) で効果が得られるが、肉芽、癬痕形成が著明な場合は外科的に切除される。¹²⁾ 本症の起炎菌は、上気道に常在する好気性グラム陰性桿菌である *Klebsiella rhinoscleromatis* (Frisch 菌) といわれてきたが、^{13),14)} 一方では Frisch 菌は雑菌であり、二次的に非特異的な増殖性炎を併発するに過ぎず、本症の本態はウイルスにより引き起こされたものであるという説もあり、^{15),16)} 確定的ではない。また臨床的、組織学的にまちがいに本症と考えられた症例で、Frisch 菌を証明できなかった場合もあるという。¹⁾ これは病期や治療法などの原因菌の活性を低下させる因子や検索範囲などによるものであろう。自験例においても術前に抗生剤投与がなされ、手術後の細菌培養や摘出標本の電顕的検索では Frisch 菌を同定できず確定診断は得られなかったが、組織学的には定型的な rhinoscleroma の所見に一致するものと考えられた。また自験例は中鼻甲介と癒着がみられたものの主病変は頬部皮下で増大した特異的な case と思われた。なお、患者には海外旅行の経験や外国人と接触した既往はなく、感染経路は不明であるが、8 年前の抜歯を契機として頬部腫脹が出現したことから、抜歯が誘因となって感染が起こったことが示唆された。

結 語

右頬部腫瘤形成を主訴として来院し、病理組織学的に本邦では極めて稀な rhinoscleroma と診断された症例を経験したので、その概要について報告した。

なお本論文の要旨は第 36 回日本口腔科学会総会 (昭和 57 年 5 月 13 日、名古屋) において発表した。

文 献

- 1) 後藤敏郎監修：耳鼻咽喉科学（下巻）第2版東京，医学書院，1971，pp. 922—924
- 2) 林 外男：支那山東省ニ原発セル鼻硬化腫の三例竝ニ組織学的知見補遺．日耳鼻 33：273—299，1927
- 3) 葛目玄吉：組織学上「スクレローム」ニ一致スル1例ニ就テ．日耳鼻 23：449—462，1917
- 4) 志水新次：日本人ニ於ケル「スクレローム」ニ就テ．附，生體染色ニヨル「ミクリッツ細胞」ノ考察．京医誌 30：1064—1067，1933
- 5) 山川吉重：上顎洞に原発した鼻硬化腫の1例．耳喉 28：103—106，1956
- 6) 藤谷哲造，井上健造，岡田 聰，高見寿夫：鼻硬化腫の一症例．耳鼻臨床 77：1443—1450，1984
- 7) Kline, R. P. and Brody, E. R.: Scleroma. Review of literature and first report of multiple familial occurrence in the United States. Arch. dermatol. Syphil. 59: 606—619, 1949
- 8) Shaw, H. J. and Martin, H.: Rhinoscleroma, a clinical perspective. J. Laringol. Otol. 75: 1011—1039, 1961
- 9) Muzyka, M. M. and Gubina, K. M.: Problems of the epidemiology of scleroma I. Geographical distribution of scleroma. J. Hyg. Epidemiol. Microbiol. Immunol. 15: 233—242, 1971
- 10) Furnas, D. W.: Recognition of scleroma (rhinoscleroma). Laryngoscope 78: 1948—1952, 1968
- 11) Woyke, S. W., Domagala, W. and Olszewski, W.: Election microscopic studies of scleroma granulation tissue. Acta Med. Pol. 10: 231—242, 1969
- 12) Durska-Zakrzewska, A.: The long-term results of antibiotic treatment for scleroma. Cesk. Otolaringol. 14: 45—49, 1965
- 13) Anderson, W. A. D.: Pathology. vol. 2 6th ed. St. Louis, C. V. Mosby. 1971, pp. 1050—1051
- 14) Hoffmann, E. O.: The etiology of rhinoscleroma. Int. Pathol. 8: 74—77, 1967
- 15) Cunning, D. S. and Guerry, D.: Scleroma. Arch. Otolaryngol. 36: 662—678, 1942
- 16) Reyes, E.: Rhinoscleroma; observation based on a study of two hundred cases. Arch. Dermatol. 54: 531—537, 1946