

症例報告

成人にみられた非定型抗酸菌による
頸部リンパ節炎の1例

堀越 裕一・花島 恒雄

森田 武子・白石 透

国鉄中央鉄道病院呼吸器内科

千葉 保之

国鉄中央鉄道病院顧問

受付 昭和 58 年 1 月 24 日

A CASE OF ATYPICAL MYCOBACTERIAL CERVICAL
LYMPHADENITIS IN AN ADULTHirokazu HORIKOSHI*, Tsuneo HANAJIMA, Takeko MORITA,
Toru SHIRAIISH and Yasuyuki CHIBA

(Received for publication January 24, 1983)

A rare case of atypical mycobacterial cervical lymphadenitis in an adult was reported.

A 33-year-old man noted a painful mass at the right angle of mandible. He had been treated with combined regimen composed of rifampicin (RFP), isoniazid (INH) and streptomycin against pulmonary infiltration for four months. He had overworked for a few months and felt very much tired. His tuberculin reaction converted to negative by that time. The mass rapidly expanded downwards while pulmonary infiltration was improving. Puncture of the mass revealed acid fast bacilli on smear and later confirmed by culture as *M. avium-intracellulare* complex. He was treated initially with combined regimen composed of RFP, INH, ethambutol and Cycloserine, subsequently composed of RFP, minocycline and Maruyama vaccine under a diagnosis of atypical mycobacterial cervical lymphadenitis. The infection was cured and no sign of its recurrence has been seen yet.

Considering his overwork and negative conversion of the Mantoux reaction, it is thought that a temporary decrease of resistance (mainly cellular immunity) was correlated to the clinical manifestation of this disease in adults.

緒 言

我国での非定型抗酸菌による頸部リンパ節炎の報告は稀で、第12回非定型抗酸菌症研究協議会報告¹⁾によれば、1980年までに僅か6例が集計されているのみである。成人における非定型抗酸菌性頸部リンパ節炎は、更に稀なものとされており、上記の我国の報告例はす

べて小児例である。Wolinsky²⁾によれば、世界で1979年までに、Wade et al.の1例³⁾が報告されているにすぎず、その後も、1980年にDeepe et al.⁴⁾が1例を追加しているのみである。我々は、今回、成人に発症した、非定型抗酸菌 *M. avium-intracellulare* complex によると思われる頸部リンパ節炎の1例を経験したので報告する。

* From the Department of Respiratory Diseases, Central Hospital of Japanese National Railways, 2-1-3, Yoyogi, Shibuya-Ku, Tokyo 151 Japan.

症 例

33歳、男性、管理職。

主訴：右頸部腫脹

家族歴：母が肺結核で死亡。兄、姉の1人ずつが肺結核に罹患している。

既往歴：10歳の頃に左慢性中耳炎に罹患。23歳時に虫垂切除術を受けた。ツベルクリン反応は幼児期に自然陽転している。粉塵歴はない。喫煙は20歳頃より1日40本。飲酒は1日ビール1本。

現病歴：昭和55年11月の定期健康診断時の胸部X線検査にて、はじめて左鎖骨下に1.0×2.0cmの限局性陰影(ⅠⅢ₁)を指摘された(図1)。自覚症状はなく、同年12月、紹介により来院した。右頸部の下顎角部にアズキ大のリンパ節を1個触知する以外には特記する理学的所見はなかった。ツベルクリン反応は、16×25/21×29と強陽性であった。連続検痰を実施したが、抗酸性菌は塗抹、培養ともに陰性であった。肺結核の診断の下に、12月下旬よりリファンピシン(以下RFP)とイソニアジッド(以下INH)の毎日、およびストレプトマイシン(以下SM)の週2回投与を開始した。翌年2月頃から残業が連日の状態と過労気味であり、次第に疲労感を覚えるようになった。4月9日ゴルフコンペに参加し、自動車の硬いシートに右頸部をもたれかけ、数時間かかって眠りながら帰宅した。ところが翌朝、右頸部の下顎角部に熱感と疼痛を伴った腫脹が出現した。昨日の長時間の頸部圧迫のためと思い、湿布をして出勤した。その後も気にはとめていたものの、忙しさのため放置していた。5月上旬になると微熱も

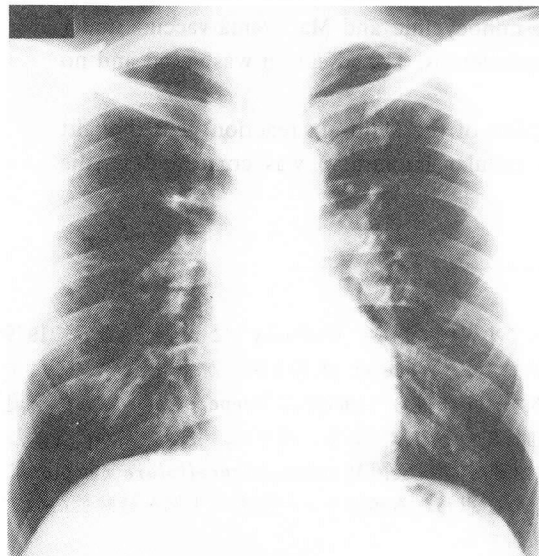


Fig. 1. Chest X-ray film (November, 1980) shows pulmonary infiltration in the left upper lung field.

出現し、腫脹は拡大し頸中部にまで達し、疼痛も増強、頸部の運動も制限されるようになった。5月18日、右結核性頸部リンパ節炎の診断で入院させた。大よその経過を図2に示した。

入院時現症：身長173cm、体重60kg。体温37.1°C。脈拍78、整。右頸部の下顎角部より頸中部にかけて小児手拳大の腫脹がみられ、腫脹部に移動性のない数個の腫瘤を触れるが波動は認めない。胸膜部には異常を認めず、その他の理学的所見も正常であった。入院時の右頸部の外観は図3のごとくであった。

入院時検査成績：検査成績を表1に示した。白血球増多、赤沈亢進、IgMとIgGおよびγ-Gの軽度の低下がみられ、ツベルクリン反応は陰性であった。胸部X線検査では、左鎖骨下の異常陰影は0.7×1.5cmと以前に比して若干縮小していた。

入院経過：頸部の広範な腫脹内の硬い腫瘤部で行なった試験穿刺にて極少量の膿が得られ、塗抹検査にて抗酸性菌がGaffky 2号であった。一般細菌は陰性であった。左耳より採取した耳漏の培養にて緑濃菌が検出されたが、抗酸性菌は検出されなかった。RFP、INH、エタンプトール(以下EB)、SMおよびセノマイシン(以下CFX)のちにアミカシン(以下AMK)を連日投与した。腫脹が広範囲であるため摘出術は行なえなかった。発熱と頸部の疼痛、熱感、腫脹および運動制限は持続し、試験穿刺部位に発赤、波動がみられるようになり、6月10日には自潰した。そこでサイクロセリン(以下CS)の連日投与を追加した。頻回に膿を採取して培養を実施したが、一般細菌は検出されなかった。6月11日、16日、20日の膿から培養により抗酸性菌が検出された。検出された抗酸性菌の性状に関する成績は表2に示したごとくであり、検出菌は*M. avium-int-racellulare complex*と同定された。自潰に伴い解熱し、短期間で頸部の熱感、疼痛および運動制限が消失した。6月末に至り耳鳴りが出現したため、SMとAMKの投与を中止し、ミノマイシン(以下MINO)の連日投与を開始した。頸部の腫脹は徐々に軽減したが、自潰部位よりの排膿は持続し、8月よりは丸山ワクチン(以下SSM(A))の週1回投与を開始した。9月上旬には下顎角部の自潰部に痂皮が形成された。9月中旬には薬剤耐性成績(表3)が判明し、無効と思われるINH、EBおよびCSの投与を中止した。10月上旬には下顎角部の瘻孔は完全に消失した。11月上旬には頸中部の自潰部に痂皮が形成された。11月22日退院。12月上旬には頸中部の瘻孔も消失した。昭和57年3月には胸部X線上の異常陰影は0.4×0.8cm(ⅠV₁)となり、同年6月にRFP、MINOの投与を中止した。その後はSSM(A)を週1回投与しつつ経過追跡中であるが、頸部は癬痕と色素沈着を残した治癒の状態にあり(図4)、現在まで再発は認めていない。なお、昭和57年12月に実施したツベルクリン反応は、 $0 \times 0 / 16 \times 19$ と陽性であ

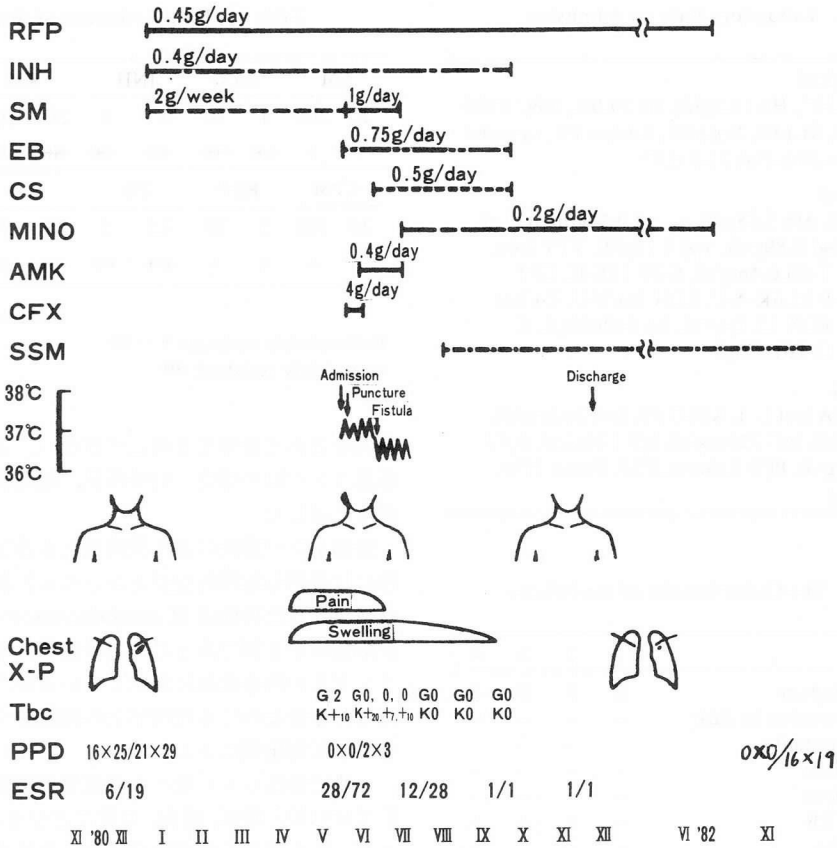


Fig. 2. Clinical course.



Fig. 3. Right cervical lymphnodes involvement on admission.

った。

考 察

非定型抗酸菌による頸部リンパ節炎は、7ヵ月から

12歳までの年齢層にわたっているとはいえ、1.5歳から5歳の小児に集中して発症している²⁾。本症は小児にみられる頸部リンパ節炎の1~6%を占めると推測される⁵⁾。しかし、成人にみられた本症は極めて少なく、自

Table 1. Laboratory Data on Admission

1. Hematological
RBC 444×10^4 , Hb 13.3g/dl, Ht 39.0%, WBC 9700 (Myelo 1%, St 14%, Seg 60%, Eosino 1%, Lympho 21%, Mono 3%), Plat 31.3×10^4
2. Biochemical
TP 6.9 g/dl, Alb 3.58g/dl, α_1 -gl 0.37g/dl, α_2 -gl 0.89g/dl, β -gl 0.89g/dl, γ -gl 1.13g/dl, TTT 0.4u, ZTT 3.4u, T-Bil 0.4mg/dl, GOT 17K-U, GPT 33K-U, Al-P 11.6K-A-U, LDH 266W-U, T-Chol 143mg/dl, BUN 12.7mg/dl, Na 140mEq/l, K 4.6mEq/l, Cl 101mEq/l
3. Serological
CRP 5+, RA test (-), ASLO 50, IgA 262mg/dl, IgM 68mg/dl, IgG 729mg/dl, IgE 175u/ml, β_1 C/ β_1 A 210mg/dl, PPD 2x3mm, ESR 28mm (1h), 72mm (2h)

Table 2. The Characteristics of the Isolates

	1	2	3	4
Colony morphology	S	S	S	S
Colony pigmentation in dark	-	-	-	-
Photochromogenicity	-	-	-	-
Nitrate reduction	-	-	-	-
Tween hydrolysis	-	-	-	-
Resistance to EB	+	+	+	+
Tolerance to PA	-	-	-	-
Resistance to PNB	+	+	+	+
Resistance to HA	+	+	+	+
Degradation of PAS	-	-	-	-
Niacin production	-	-	-	-
Acid phosphatase test	-	-	-	-
Catalase test	+	+	+	+

Table 3. Drug Resistance of the Isolate

SM		PAS		INH		KM		EVM	
20	200	1	10	0.1	5	25	100	25	100
+	+	+++	+++	+++	+++	+++	+++	+++	+++
CPM		RFP		EB		TH		CS	
25	100	5	10	2.5	5	25	50	20	40
+	+	+	+	+++	+++	+++	+++	+++	+++

(Microtiter method)

incompletely resistant + ~ +++
 completely resistant +++

験例を含めて世界で3例にすぎない。3例の性、年齢、罹患リンパ節の部位、局所所見、起炎菌、治療などを表4に示した。

頸部リンパ節炎により検出される非定型抗酸菌の菌種には著明な地理的変動がみられる²⁾。我国の報告例より検出された菌種は *M. scrofulaceum* が4例、*M. intracellulare* が2例であった¹⁾。この成績は米国のクリーブランドでの検出成績に類似しているが²⁾、我国の報告例はまだ少数なので地理疫学上の特徴についての考察は今後の症例集積にまちたい。

一般に頸部リンパ節への非定型抗酸菌の侵入経路としては口腔、咽頭、歯肉、口唇などが考えられている²⁾。また、肺非定型抗酸菌症では発症進展の要因として全身の条件の悪化が重要視されている⁶⁾。本例での非定型抗酸菌の頸部リンパ節への侵入経路、および頸部リンパ節炎の発症進展機序についてはもちろん断定はできないが、肺病変の起炎菌とも関連していくつかの機序を考えることが可能である。第1の仮説は、頸部リンパ節



Fig. 4 Scars and pigmentation are seen on November, 1982.

Table 4. Reported Atypical Mycobacterial Lymphadenitis in Adults

No.	Authors	Sex	Age	Site of Affected Lymphnodes	Size and Characteristics	Culture for Mycobacteria	Treatment
1	Wade et al. (1969)	F	23	Left submandibular	Penny sized, tender, immovable, fluctuant	Runyon group III	Excision
2	Deepe et al. (1980)	F	25	Right submandibular	3×4cm, nontender, movable	<i>M. avium-intracellulare</i> complex	Excision + Chemotherapy
3	Present case (1982)	M	33	Right angle of the mandible	Child's fist sized, tender, immovable, fluctuant	<i>M. avium-intracellulare</i> complex	Chemotherapy

への非定型抗酸菌の侵入経路として、肺における病変から菌がリンパ行性に頸部に侵入したと考えることであるが、これはリンパ節炎が下顎角部に始まり、のちに頸中部に進展している事実から考えにくい。第2の仮説は、経気道的に非定型抗酸菌が肺と頸部リンパ節とに侵入し、非定型抗酸菌症が肺とリンパ節とに形成され、RFPを含む強力化学療法中にリンパ節炎に初期悪化が起こったと考えることである。この場合、結核における知見を参考にすると⁷⁾ 化療約3.5ヵ月後に急速に進展したことや最終的には治癒したことなどは初期悪化を支持する所見であろうが、臨床症状の持続の長いこと、少量であっても排膿が続いたこと、ツベルクリン反応が減弱したことや治癒までに長期間を要したことなどは初期悪化との解釈に矛盾する所見と思われる。また、頸部にのみ真の悪化がみられたのは初期悪化とすると不自然であり、頸部リンパ節炎を初期悪化で説明することは極めて困難である。第3の仮説は、既に存在していた肺結核症に非定型抗酸菌による頸部リンパ節炎が合併したとするものである。この場合は、陰影発見時ツベルクリン反応が強陽性であり、且つ強力化学療法にて短期間にて異常影が減少したことは、別個に肺結核が存在したことを支持する所見であるとし、肺結核病変が安定した時点で過労をきっかけにツベルクリン反応の減弱により代表される全身の抵抗力の減弱に乗じて、既に下顎角部のリンパ節に侵入していた*M. avium-intracellulare* complexによるリンパ節炎が発症し、急速に進展したと解釈する。*M. avium-intracellulare* complexは自然界に広く分布しており⁸⁾、不顕感染の機会があったとしても不思議ではなく、この第3の考え方が本症例の経過の説明に最も自然なように思われる。

小児にみられる非定型抗酸菌によるリンパ節炎は通常頸上部、特に下顎周囲のリンパ節にみられ、リンパ節はかなり速やかに軟化自壊し、瘻を形成し、排膿が持続する²⁾ 成人にみられた3例ではいずれも顎周囲に発症し、3例中2例で軟化し、本例では排膿が持続した。したがって頸上部、特に顎周囲のリンパ節に腫大を認め、かなり速やかに軟化する場合には年齢を問わず本症を念頭におき非定型抗酸性菌の検索を行なうべきで

あろう。

Schaadらは自験82例と文献例とを併せた380例につき治療成績を検討した。外科切除の後に化学療法をうけた156例では95%の治癒率であり、外科切除だけの149例では92%の治癒率であった。ところが切開排膿をうけた63例では化学療法のあるなしにかかわらず16%の治癒率であり、また化学療法だけの10例では10%の治癒率であった。このことから彼らは外科切除が第一選択であり、化学療法は外科切除ができない場合か完全切除が困難な場合に適応となると結論づけている⁹⁾ Mandellらは切開排膿が化学療法によって治癒できなかった4例にRFPを投与することによって治癒させることができたと報告し、外科切除が不可能な場合にこれにとってかわるものとしてRFPをあげている¹⁰⁾ しかし、Schaadらは最初からINH、RFPにて治療された3例のいずれもが治癒しなかったと報告しており⁹⁾ 意見の一致をみていない。我々の例ではRFP、INH、SM、CSなどの抗結核薬にAMK、MINOなどの一般抗生剤を併用し、これに丸山ワクチンを追加することにより幸いにも治癒させることができたが、切除不能例での化学療法に関しては本例の経験のみから早急に結論を下すべきでなく、今後の症例の積み重ねを待つて評価するべきものと思われる。

結 語

成人男性に発症した非定型抗酸菌による頸部リンパ節炎の1例を報告し、成人における本症の発症には生体側の抵抗力の減弱が大きな要因を占めることを強調した。また、成人においても常に本症の存在を念頭に置くべきことを述べ、化学療法による治療の可能性に関して考察を加えた。

なお、本論文の要旨は第102回日本結核病学会関東支部、第56回日本胸部疾患学会関東地方会合同学会で報告した。

文 献

- 1) 非定型抗酸菌症研究協議会：第12回非定型抗酸菌症研究協議会報告，1980。
- 2) Wolinsky, E.: Nontuberculous mycobacteria and

- associated diseases, *Am Rev Resp Dis*, 119 : 107, 1979.
- 3) Wade, W.M. Jr. et al. : Neck mass caused by atypical mycobacteria : report of a case, *J Oral Surg*, 27 : 137, 1969.
 - 4) Deepe, G. S. et al. : Atypical mycobacterial lymphadenitis in an adult, *Chest*, 78 : 882, 1980.
 - 5) Thompson, J.N. et al. : Atypical mycobacterial cervical adenitis : Clinical presentation, *Laryngoscope*, 90 : 287, 1980.
 - 6) 東村道雄 : 肺非定型抗酸菌症の発症要因, *結核*, 52 : 367, 1977.
 - 7) 浦上栄一 : 結核の悪化 : 鑑別診断—a) 初期悪化, *結核*, 57 : 50, 1982.
 - 8) 東村道雄 : 非定型抗酸菌の感染源と感染経路, *結核*, 52 : 261, 1977.
 - 9) Schaad, V. B. et al. : Management of atypical mycobacterial lymphadenitis in childhood : a review based on 380 cases, *J Pediatrics*, 95 : 356, 1979.
 - 10) Mandell, F. and Wright, P. F. : Treatment of atypical mycobacterial cervical adenitis with rifampicin, *Pediatrics*, 55 : 39, 1975.