

当初舌癌が疑われた舌結核の1症例

—本邦報告16例の文献的考察を含めて—

古堅 誠 仲村 秀太 玉城佑一郎 原永 修作
屋良さとみ 比嘉 太 健山 正男 藤田 次郎

要旨：症例は特に既往歴を有しない56歳の男性。約9カ月前より出現した疼痛・潰瘍を伴う舌腫瘍と約半年間持続する湿性咳嗽を主訴に当科紹介入院となった。舌病変のほか、頸部リンパ節腫脹があり、また、胸部X線写真上両側上肺野の空洞性病変と全肺野に小粒状影が指摘された。当初舌癌に合併した肺結核を疑われたが、舌生検および喀痰検査の結果、排菌陽性活動性肺結核に合併した二次性舌結核と診断された。isoniazid, rifampicin, ethambutol, pyrazinamideにより結核治療を行い、舌病変および舌痛は速やかに改善した。今回、最近の舌結核本邦16症例について行ったわれわれの検討では、舌結核は活動性の肺結核を伴っていることが多く、排菌している可能性が高いと考えられた。また、検討症例の中には、早期に積極的な精査が行われなかったために診断が遅れた症例も含まれていた。舌の難治性潰瘍例では、舌結核および肺結核の可能性を考慮し、早めに舌病変の生検や抗酸菌検査、胸部X線撮影を検討する必要があると考えられた。

キーワード：舌結核、二次性結核、排菌陽性肺結核、舌潰瘍

はじめに

生活環境の改善や医学の進歩などにより、結核の罹患率・死亡者はこの半世紀の間に激減しているが、近年、人口の高齢化や糖尿病・慢性腎不全・副腎皮質ステロイド薬・免疫抑制剤投与を含めたハイリスク患者の増加などにより、その罹患率減少の鈍化が認められ問題となっている。

舌結核は結核罹患率が高かった時代においても稀な疾患であったが、結核罹患率が減少した今日においても依然として少ないながらも報告例が散見され²⁾、臨床上見過ごすことのできない疾患である。

今回われわれは、当初肺結核に合併した舌癌を疑われたが、舌生検により舌結核と診断され治療しえた1例を経験したので報告する。

症 例

症 例：56歳、男性。

主 訴：舌痛、湿性咳嗽。

既往歴：特記すべき既往歴なし。

職業歴：建設業、モズク養殖業。

家族歴：父・兄弟に結核罹患歴あり。

喫煙歴：20本/日×41年。飲酒歴：泡盛2合×3回/週。

現病歴：2007年4月頃より、疼痛・潰瘍を伴う舌腫瘍を認めていたが放置していた。また、同年6月頃より、湿性咳嗽・盗汗・咳嗽時胸痛を自覚するようになった。2008年1月、舌の痛みで食事ができないことや咳嗽が持続することを主訴に近医を受診した。舌病変のほか、頸部リンパ節腫脹があり、胸部X線写真上両側上肺野の空洞性病変と全肺野に小粒状影を指摘され、舌癌に合併した肺結核を疑われ同日当科紹介入院となった。

入院時身体所見：身長163 cm、体重51.3 kg、血圧160/80 mmHg、脈拍103/分・整、体温37.3℃、右舌縁に径4 cm大の白苔・潰瘍を伴う腫瘍あり (Fig. 1)、右顎下部に3個・左顎下部に2個・両側後頸部に1個ずつの径1 cm大のリンパ節を触知した。心音は清で心雑音なく、

呼吸音は両側背下部の呼吸音減弱を認めたが、ラ音は聴取されなかった。

入院時検査所見 (Table 1): WBC 8900/mm³, CRP 4.63 mg/dl, および ESR 38 mm/h と炎症反応の上昇を認めた。また、低アルブミン血症と血清 ALP 値の軽度上昇を認めた。

入院時画像所見: 胸部 X 線写真と胸部 CT では、両側上肺野に空洞性病変と全肺野に小粒状影を認めた (Fig. 2)。また、舌部 MRI 検査では T1 強調画像にて舌右側 19



Fig. 1 A photograph of this patient's tongue taken on admission, showing a tumor with ulcer and white moss in the right margin part.

×26 mm の範囲に低信号化した病変の存在が確認され、さらに dynamic study にて早期に同部位の強濃染像が得られた (Fig. 3 A, 3B)。

入院後経過: 喀痰塗抹検査にて抗酸菌陽性であり、また、喀痰 PCR 検査にて結核菌陽性、喀痰培養検査でも結核菌が検出され、排菌陽性の肺結核 (結核病学会分類 b II 2) と診断された。舌病変に関しては舌部 MRI 所見上も舌癌に矛盾しない所見が得られたため、舌癌を疑って舌生検を施行したところ、多数のラングハンス巨細胞を含む比較的小型の類上皮細胞性肉芽腫が多発した所見が得られた (Fig. 3C)。舌生検検体からの結核菌検出は確認されなかったが、肺病変の存在と舌生検病理検査の結果から舌結核と診断した。結核の診断後、イソニアジド 300 mg/日、リファンピシン 500 mg/日、エタンブトール 750 mg/日、ピラジナミド 1200 mg/日で治療を開始した。舌病変は速やかに縮小傾向を示し約 1 カ月半の経過で消退 (Fig. 4)、また、舌痛も改善し臨床的にも舌結核に合致した経過が得られた。肺病変は経過中に微熱や胸部陰影増悪などの初期悪化と思われる所見を呈したが、治療開始約 3 カ月半頃より改善、喀痰塗抹検査にて抗酸菌 3 回陰性を確認し退院となった。結核菌の薬剤感受性検査の結果は使用した薬剤すべてにおいて感受性良好であった。その後の外来治療でも結核病変の再燃なく経過良好である。

考 察

舌結核は、1804 年に報告された Portal と Scott の症例が最初とされるが^{2)~4)}、口腔領域では稀な疾患である。

Table 1 Laboratory data

Hematology		Chemistry		Serology	
WBC	8900 /mm ³	TP	7.8 g/dl	CRP	4.63 mg/dl
Neu	76.4 %	ALB	3.3 g/dl	SCC	0.4 ng/ml
Eos	1.7 %	GLU	94 mg/dl	HTLV-1Ab	(-)
Bas	0.3 %	BUN	9 mg/dl	HIVAb	(-)
Lym	14.4 %	CRE	0.51 mg/dl		
Mon	7.2 %	Na	139 mEq/l		
RBC	478 × 10 ⁴ /mm ³	K	4.2 mEq/l	Urinalysis	
HGB	13.7 g/dl	Cl	104 mEq/l	Protein	(-)
HCT	44.0 %	Ca	9.0 mg/dl	Sugar	(-)
MCV	92 fl	T.Bil	0.5 mg/dl	Occult blood	(-)
MCH	28.7 pg	AST	22 IU/l		
MCHC	31.1 %	ALT	16 IU/l		
PLT	44.2 × 10 ⁴ /mm ³	ALP	369 IU/l	Sputum	
ESR	38 mm	LDH	168 IU/l	Acid-fast bacilli	
		γ-GTP	38 IU/l	Smear	(1+)
		CPK	27 IU/l	TB-PCR	(+)
		AMY	93 IU/l	Culture	(+)
		T.cho	107 mg/dl		
		TG	73 mg/dl		
		β-D-glucan	7.9 pg/ml		

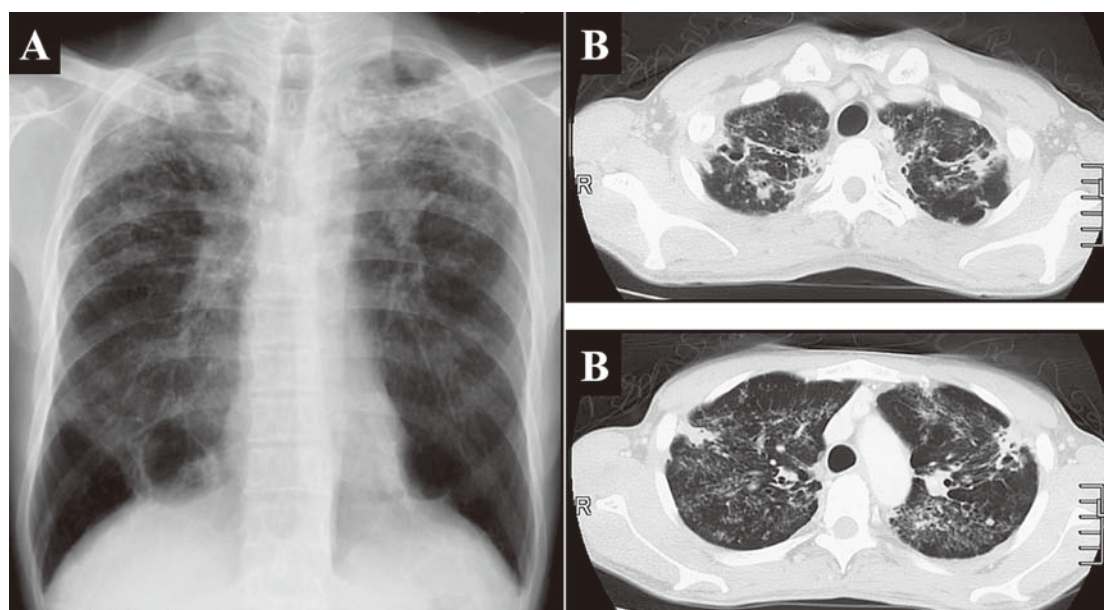


Fig. 2 A chest roentgenogram (A) and chest computed tomography (CT) scan (B) on admission, showing infiltration around cavities in the both upper lobes and granular shadow over the both lung lobes.

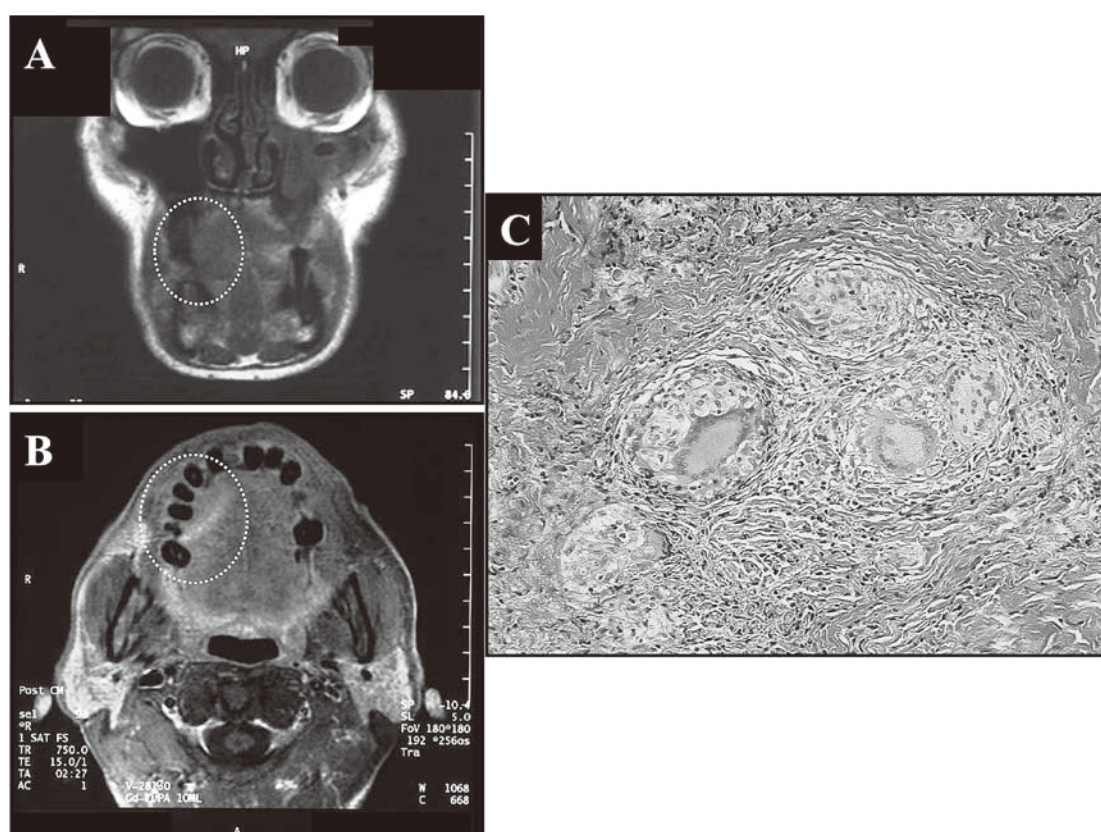


Fig. 3 T1-weighted (A) and dynamic (B) magnetic resonance imaging (MRI) of the tongue on admission, demonstrating a lesion with low signal intensity (19×26 mm) and early-stage enhancement (space enclosed by dot-line) in the right side of tongue. (C) Hematoxylin-Eosin staining demonstrated epithelioid cell granuloma with Langhans giant cells.

本邦においては、1885年河本により初めて報告され、小笠原による検討では1885年から1976年までに76例の報告がある²⁾。その発生頻度は諸家の報告により若干の差異はあるが、結核患者の0.008~0.97%で、菌陽性結核患者の約1%に存在するとされる³⁾。しかし、結核患者の剖検例の検討では、19.9~49.3%に舌結核を認めたとする報告もあり、肺結核末期の患者では高頻度に出現するとの考えもある²⁾。

これまでの報告では舌結核の臨床的特徴として、中年以降の男性に多い、機械的刺激の加わる舌尖部や舌縁部に好発する、病型では潰瘍型・結核腫が多いなどの傾向がある²⁾⁶⁾。本症が中年以降に多い原因として、加齢による治癒力の低下や舌組織の脆弱性、ビタミンB₂不足による口内炎など⁶⁾、また、男性に多い理由として、飲酒や喫煙など嗜好品の影響が考えられている²⁾⁴⁾⁷⁾。本症

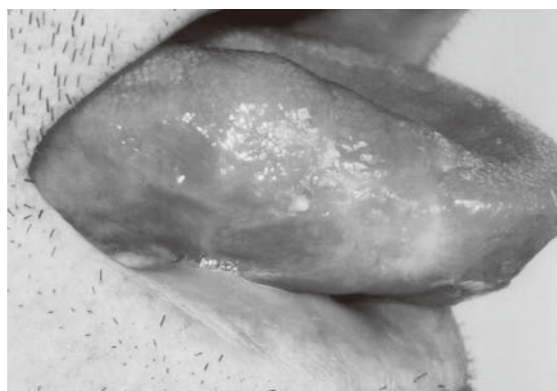


Fig. 4 A photograph of the tongue taken on the 45th day of treatment, showing the improvement of ulcerated lesion.

例も中年男性に発症し、また、舌縁部に潰瘍病変を形成しており、舌結核に典型的な臨床像を呈していた。

舌結核の感染経路としては、他部位の初感染病巣からの二次感染（管内性・血行性・リンパ行性）や口腔内の初感染が考えられているが、舌結核のほとんどは二次感染例であり、初感染例の報告⁸⁾は稀である。これまでの検討から、舌結核症例では活動性結核を合併する割合が多く、喀痰・胃液より結核菌が高濃度で検出されている²⁾。また、剖検例の検討において扁桃・喉頭結核の合併例が多いこと、舌上皮直下にほとんどの病変が認められることなどが報告されており、二次感染の舌結核のほとんどは喀痰中の結核菌による管内性感染であり、血行性やリンパ行性は少ないと考えられている²⁾。発症機転として、不良補綴物などの刺激による局所の外傷が感染の成立に重要な役割を果たすという意見もあるが²⁾⁶⁾⁹⁾、その関与は明らかではない。舌結核の病型と感染経路に関して述べた追川らの報告では、舌結核の大半を占める潰瘍型病変は主に管内性感染により発症し有痛性であることが多いが、腫瘍型は血行性・リンパ行性に発症し疼痛がなく異物感を訴えるものが多いとしている¹⁰⁾。本症例では、肺に空洞を有する活動性肺結核を合併し、多量の排菌を伴っていたことから、管内性二次感染の可能性が示唆され、追川らの報告同様、有痛性の潰瘍病型を呈していた。病変は機械的刺激の加わりやすい舌縁部に認められたが、発症機転として舌粘膜外傷との関連は不明であった。

今回われわれは、医学中央雑誌により検索しえた最近の舌結核本邦報告例について検討を行った（Table 2）。1983年以降、計16症の舌結核報告例が確認された²⁾⁷⁾¹¹⁾¹²⁾。

Table 2 Tuberculosis of the tongue in Japan (1983–2008)

	Age/Sex	Region (of tongue)	Pattern of disease	Sputum examination	Other tuberculous lesion	Reporter	Year
1	48/F	Back	Nodular	Culture (－)	None	Mizuki ¹¹⁾	1983
2	55/M	Back	Ulcer	Gaffky 2	Lung	Nishijima	1983
3	68/F	Margin	Ulcer	Culture (－)	Cervical lymph node	Sakurai ¹²⁾	1984
4	83/M	Apex	Ulcer	Gaffky 8	Lung	Nishimiya	1985
5	54/M	Apex	Tumor	Gaffky 2	Lung	Nakaaki	1987
6	46/M	Back	Ulcer	Culture (+)	Lung	Ogi ⁷⁾	1987
7	60/M	Back/ Inferior surface	Ulcer	Gaffky 6	Lung	Okitsu	1987
8	67/M	Apex/Margin	Ulcer	Gaffky (+)	Lung	Kamiki	1988
9	46/M	Apex/Margin	Ulcer	Culture (－)	Lung	Komuro	1988
10	53/M	Apex	Ulcer	Culture (+)	Lung	Hanzawa ²⁾	1989
11	71/M	Apex	Ulcer	Gaffky 3	Lung	Katsumasa	1992
12	52/M	Back	Ulcer	Gaffky 2	Lung	Ito	1998
13	50/M	Back	Ulcer	Gaffky 5	Lung	Nakatsu	1998
14	61/M	Unknown	Ulcer	Gaffky 8	Lung	Kubota	1998
15	45/M	Inferior surface	Ulcer	Gaffky (+)	Lung	Okuno	2002
16	45/M	Margin	Ulcer	Unknown	Lung	Kato	2003

近年，報告数は減少傾向にあり，2000年以降はわずかに2例の報告が確認されるのみであった。罹患者の年齢は45～83歳（平均57歳）で，14例（88%）が男性に発症していた。病変は約半数の症例が舌尖部・舌縁部に認められ，病型としては14例（88%）が潰瘍型病変を呈していた。また，14例（88%）が肺結核を合併し，記載のない1例と胃液培養陰性1例を除く全例で排菌陽性が確認された。肺結核合併が確認されなかった残りの2症例は，原発性舌結核¹¹⁾および頸部リンパ節結核との合併症例¹²⁾と考えられた。最近の舌結核症例について行った今回の検討でも，過去に報告されてきた舌結核の臨床的特徴と合致する所見が得られた。検討症例の中には，当初から舌病変に対し対症的な治療が継続されるのみで積極的な精査が行われずに診断の遅れた症例も含まれていた。

舌結核は稀な疾患ではあるが，長年にわたって報告例が散見される。舌結核は活動性の肺結核を伴っていることが多く，排菌している可能性が高いため，感染性の点からも十分注意が必要な疾患である。舌の難治性潰瘍例では，舌結核および肺結核の可能性を考慮し，早めに舌病変の生検や抗酸菌検査，胸部X線撮影を検討する必要があると考えられた。

文 献

- 1) 富岡洋海：わが国における結核の現状と将来，今後の結核対策。「結核」，第4版，泉孝英監修，医学書院，東京，2006，413-419.
- 2) 半沢元章，畔田 貢，野谷健一，他：舌結核の1例．日口外誌．1989；35：737-744.
- 3) Handfield-Jones RM: Tuberculous affections of the tongue. Lancet. 1923；1：8-11.
- 4) Morrow H, Miller HE: Tuberculosis of the tongue. JAMA. 1924；83：1483-1487.
- 5) 岡原寿典，岸 忠生，後藤利彦：舌結核の1例．外科の領域．1958；5：1033-1036.
- 6) 樋崎 亨，兼子順男，高津忠夫，他：舌結核の一症例．耳展．1973；16：37-40.
- 7) 小木信美，杉浦正幸，早川直義，他：舌結核の1例．日口外誌．1987；33：1387-1391.
- 8) Garg RK, Singhal P: Primary tuberculosis of the tongue: a case report. J Contemp Dent Pract. 2007；8：74-80.
- 9) 芋川正彦，河合純一郎，長谷川英之，他：舌結核の1例．耳鼻臨床．1980；73：599-602.
- 10) 追川孝雄：舌結核の一例に就いて．日医大誌．1955；23：391-394.
- 11) 水城春美，柳澤繁孝，清水正嗣：舌結核の1例．日口外誌．1983；29：1972-1975.
- 12) 桜井一生，森 茂樹，内藤健晴，他：原発性舌結核の1例．耳展．1984；27：411-414.

1) 富岡洋海：わが国における結核の現状と将来，今後の

Case Report

TUBERCULOSIS OF THE TONGUE INITIALLY SUSPECTED OF
TONGUE CANCER: A CASE REPORT

— Including the Search for Recent 16 Cases in Japan —

Makoto FURUGEN, Hideta NAKAMURA, Yuichiro TAMAKI, Shusaku HARANAGA,
Satomi YARA, Futoshi HIGA, Masao TATEYAMA, and Jiro FUJITA

Abstract A 56-year-old man, having no particular past history, was admitted to our hospital, with a 9-month history of painful ulcerated lesion of the tongue and a 6-month history of productive cough. A physical examination revealed swelling of his cervical lymph nodes, and a chest roentgenogram on admission showed cavities in the both upper lung fields and nodular shadows over the both lung fields. He was initially suspected of having both cancer of the tongue and pulmonary tuberculosis, but finally diagnosed as secondary tuberculosis of the tongue due to sputum smear-positive pulmonary tuberculosis by biopsy of the tongue and sputum examination. He was treated with isoniazid, rifampicin, ethambutol and pyrazinamide, and his pain and ulcerated lesion of the tongue rapidly improved.

Due to our search for recent 16 cases of tuberculosis of the tongue in Japan, we found that the patients of tuberculosis of the tongue were more likely to have concurrently sputum smear-positive pulmonary tuberculosis. In some cases, the

delay in diagnosis was seen. These cases suggest that refractory ulcerated cases of the tongue should be subjected to the biopsy and examination for acid fast bacilli of the tongue with suspicion of tuberculosis of the tongue, and then a chest roentgenogram with suspicion of pulmonary tuberculosis.

Key words: Tuberculosis of the tongue, Secondary tuberculosis, Smear-positive TB, Ulcer of the tongue

Department of Medicine and Infectious Diseases, Graduate School of Medicine, University of the Ryukyus

Correspondence to: Makoto Furugen, Department of Medicine and Infectious Diseases, Graduate School of Medicine, University of the Ryukyus, 207 Uehara, Nishihara-cho, Nakagami-gun, Okinawa 903-0215 Japan.
(E-mail: mafurugenn@msn.com)