

巨大な膿瘍を形成した亜急性壊死性リンパ節炎の1例

紙谷 祐衣 小林 賀子 萩原 晃 井谷 茂人

厚生中央病院 耳鼻咽喉科

A case of subacute necrotic lymphadenitis with a large abscess

Y.KAMITANI, N.KOBAYASHI, A.HAGIWARA & S.ITANI

Department of Otorhinolaryngology, Kohseichuo Hospital, Tokyo, Japan

Subacute necrotic lymphadenitis is lymphadenitis with unknown origin and is not a rare entity. An abscess is formed in only limited cases. We reported a case of suspected subacute necrotic lymphadenitis with a large abscess.

A 34-years old woman visited our clinic because of the bilateral cervical swelling. She had a recurrent fever of 40°C, but was untreated for one month. She had neck swelling which had 7cm on the left side and 5cm on the right side at the initial visit. The blood examination showed inflammatory reaction. CT scan showed bilateral cervical lymphadenopathy accompanied by internal abscess. Tuberculin test, abscess smear and PCR tests were negative. The titers for Epstein-Barr virus, cytomegalovirus, human immunodeficiency virus, *Toxoplasma gondii* and *Trombicula*, and interleukin-2 were all negative. Hemolytic streptococci were detected in the abscess culture, but the cytological diagnosis was negative. The administration of PIPC and LVFX was begun, but there was no definite improvement. Steroidal i.v. was begun on the 4th hospital day after denying the possibility of tuberculosis infection. Her condition improved gradually and she was discharged from the hospital on the 14th hospital day.

A variety of illnesses results in cervical lymphadenopathy, and those induced by infection were common in the younger age. When the images show formation within the cervical swelling, tuberculosis infection should be suspected. However tuberculosis and other infectious diseases or cancer were ruled out in this case. Subacute necrotic lymphadenitis very rarely forms large abscess, but we suspected this case as subacute necrotic lymphadenitis because of effect of the steroid therapy and subacute course.

【はじめに】

頸部膿瘍をきたす疾患，頸部リンパ節腫脹をきたす疾患は共に稀ではないが，大きな膿瘍を伴うリンパ節炎は少なく，診断に苦慮することがある。

今回我々は，若年女性で両側頸部リンパ節腫脹と内部の巨大な膿瘍を伴い，臨床経過から亜急性壊死性リンパ節炎と診断した1例を経験したので報告する。

【症例】

症例：34歳 女性 会社員

主訴：両側頸部腫脹

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

生活歴：ペットの飼育や接触歴なし

嗜好歴：大酒家

現病歴：2011年9月上旬頃から左頸部の腫脹を自覚した。その後，右頸部も腫脹し，両側とも徐々に増大した。9月中旬には繰り返す39度の発熱があったが放置しており，10月上旬に当院を受診し入院加療を受けた。

経過：初診時，両側頸部には発赤・圧痛を伴い，波動をふれる大きな腫脹があった。体温は36.1度で，呼吸困難はなかった。左頸部には7cm大の弾性軟，右頸部には5cm大の弾性硬の腫脹があった（Fig. 1）。血液検査では，WBC 17100/ μ l（Stab13%，Seg66%，Lymph13.0%，Mono8.0%），CRP 10.8mg/dlと炎症反応の上昇があり，GOT 83IU/l，GPT 93IU/l，LDH 274IU/l，



Fig. 1 Cervical finding at the initial visit

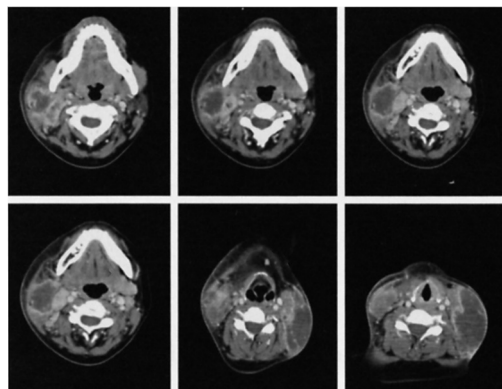


Fig. 2 Contrast enhanced CT of the neck

ALP 284IU/lと肝胆道系酵素の軽度の上昇があった。頸部造影CTでは両側の巨大な頸部リンパ節腫脹と内部の大きな膿瘍が認められた（Fig. 2）。咽頭喉頭に感染源となりうる病巣や腫瘍性病変はみられなかった。精査・加療の目的で入院とし，入院当日に穿刺排膿を行った。漿液性の茶褐色の貯留液が右から約3ml，左から約12ml吸引でき，膿瘍は一時的に縮小したが，翌日には再腫脹した。当初は皮膚所見や画像所見から結核を疑い，ツベルクリン反応，穿刺排膿液の抗酸菌塗抹検査・PCR検査，クオンティフェロン検査を行ったがすべて陰性であり，結核は否定された。1日目からピペラシリン（PIPC）2g×2の点滴投与を開始したが頸部腫脹に改善はみられなかった。結核の否定後，入院4日目からステロイド治療を開始した。コハク酸ヒドロコルチゾンナトリウムを漸減投与した。ステロイド治療開始後から頸部腫脹は著明に改善した。入院6日目に両側頸部が一部自壊したため，自壊した部位を広げるように切開した。同部位から大量の黄白色の排膿があり，切開部は5日間開窓していた。並行して行ったEBウイルス・サイトメガロウイルス・HIV・トキソプラズマウイルス・ツツガムシ・HBV・HCVの検査も陰性，SCC・IL2-Rも陰性であった。膿の細菌培養検査では溶連菌が検出され，細胞診では炎症性細胞のみであった。

Table 1 Development after hospital admission

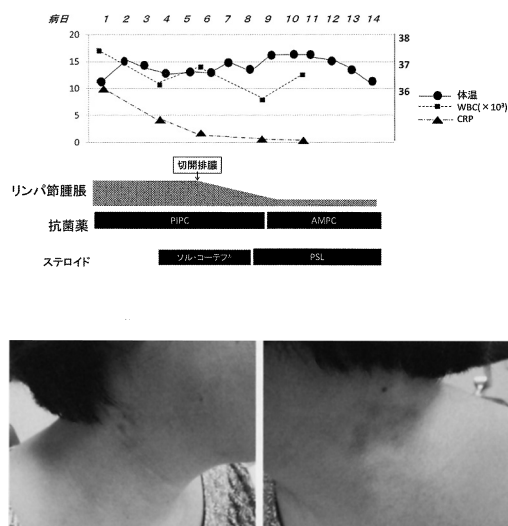


Fig. 3 Cervical finding after therapy

その後、頸部腫脹は徐々に改善し、入院14日目で退院した (Table 1)。退院時に頸部リンパ節は左右ともに3 cm大で残存していた。その後も外来で25日間にわたりステロイドの内服を漸減投与し、頸部リンパ節は消失した。退院後1か月の頸部造影CTでは両側頸部リンパ節は正常範囲内となり、以後5か月間再発はみられていない (Fig. 3)。

【 考 察 】

亜急性壊死性リンパ節炎は、1972年に菊地ら¹⁾によって病理組織学的見地から報告された疾患で、一般に10歳代～30歳代のアジア人女性に多い²⁾。過去の報告では、EBウイルス、サイトメガロウイルス、HSV 1, HSV 6, HSV 8, varicella zoster, parvovirus B19^{2,3)}, parainfluenza virus⁴⁾, HTLV-1⁵⁾, HIV⁶⁾, Bartonella henselae⁷⁾, Brucella melitensis⁸⁾, Yersinia enterocolitica⁹⁾, Toxoplasma gondii¹⁰⁾, Entamoeba histolytica¹¹⁾, Giardia lamblia¹²⁾, Staphylococcus Epidermi-

dis¹³⁾などのさまざまな病原体が亜急性壊死性リンパ節炎を引き起こす可能性があると報告されているが真の原因は不明である。血液検査上は、20-32%^{16, 17)}で白血球の減少がみられ、時に血小板減少や汎血球減少、赤沈の上昇、GOT, GPT, LDHなどの上昇もみられる。確定診断は生検で、病理組織は傍皮質を中心とした壊死巣と大型T細胞と組織球の増生と浸潤が特徴である。ほとんどの症例でリンパ節腫脹は1～4か月で自然に消退し再発は稀である。過去の報告では102人中8人で早期再発、13人で晩期再発がみられた¹⁸⁾。治療はステロイドが有効であるが容量や投与方法については確立されていない。亜急性壊死性リンパ節炎は日常臨床でよく遭遇する疾患であるが、膿瘍をきたした症例の報告は非常に少ない^{14, 15)}。

頸部リンパ節腫脹の原因となる疾患の中で、膿瘍を形成する可能性の高い疾患は、結核、悪性腫瘍頸部リンパ節転移、悪性リンパ腫、放線菌症、ねこひっかき病などがあげられる。本例では経過が長く無治療で、皮膚発赤を伴う膿瘍形成したリンパ節腫脹であったため、まず結核を疑いツベルクリン反応や穿刺排膿液の抗酸菌塗抹検査・PCR検査を行ったが、結果はすべて陰性であり、結核は否定された。血液検査所見では好中球優位の白血球の上昇がみられ、細菌感染も一因として考えられた。膿の細菌培養検査では溶連菌が検出されたが抗菌薬の反応が乏しく、溶連菌感染による頸部リンパ節炎は否定的と考えた。また、ペットの飼育歴、猫との接触歴もなかったため、ねこひっかき病は否定的であった。前述したように亜急性壊死性リンパ節炎の確定診断は病理所見による。本例では、考えられる感染性疾患が否定的であり、細胞診から悪性腫瘍が除外されたこと、抗菌薬に反応がなくステロイドが著効したこと、受診までの経過が長く亜急性の経過をたどったことなどから、病理所見で確定できてはいないが亜急性壊死性リンパ節炎と診断した。

膿瘍を形成する亜急性壊死性リンパ節炎は非常にまれであり、過去には深頸部膿瘍を合併した報

告がある¹⁰⁾。報告例では耳下腺深部から副咽頭間隙にかけての深頸部膿瘍を認め、切開排膿及び抗菌薬投与によって著明な改善を認めた。切開時に採取したリンパ節から病理組織学的に診断されている。しかし発症機序については、深頸部膿瘍の発症により壊死性リンパ節炎類似の反応性リンパ節腫大を来した可能性が高いと考察されているので、本例とは異なる可能性がある。

亜急性壊死性リンパ節炎では大きな膿瘍を形成するものは非常にまれであるが、今回は無治療で長期経過をたどったために巨大な膿瘍を形成したと思われる。原因不明のリンパ節炎の場合、亜急性壊死性リンパ節炎は常に念頭におくべき疾患である。

【ま と め】

頸部膿瘍を発症し、臨床経過から亜急性壊死性リンパ節炎が疑われた1例を報告した。

亜急性壊死性リンパ節炎では大きな膿瘍を形成するものはまれであり、診断に苦慮した。

参 考 文 献

- 1) 菊池昌弘：特異な組織像を呈するリンパ節炎について、日血会誌，35：379～380，1972。
- 2) Bosch X, Guilabert A, Miquel R, Campo E.：Enigmatic Kikuchi-Fujimoto disease：a comprehensive review, *Am J Clin Pathol*, 122：141-152, 2004。
- 3) Sumiyoshi Y, Kikuchi M, Minematu T, Ohshima K, Takeshita M, Minamishima Y.：Analysis of herpesvirus genomes in Kikuchi's disease. *Virchows Arch*, 424：437-440, 1994。
- 4) Gomez Garcia AM, Martinez Hurtado E, Ruis Ribera I：Parotiditis viral infection associated with Kikuchi-Fujimoto disease. Review of 1 case. *An Med Interna*, 21：135-137, 2001。
- 5) Atarashi K, Yoshimura N, Nodera H, Tsukamoto K, Beppu H, Kanayama M：Recurrent histiocytic necrotizing lymphadenitis (Kikuchi's disease) in a human T lymphotropic virus type I carrier. *Intern Med* 35：821-825, 1996。
- 6) Vassallo J, Coelho Filho JC, Amaral VGP：Histiocytic necrotizing lymphadenitis (Kikuchi lymphadenitis) in an HIV-positive patient. *Rev Inst Med Trop Sao Paulo* 44：265-268, 2002。
- 7) Chung JY, Kim SW, Han TH, Lim SJ：Detection of Bartonella henselae gene sequence in lymph nodes of children with Kikuchi's disease. *Pediatrics* 115：1112, 2005。
- 8) Charalabopoulos K, Papalimneou V, Charalabopoulos A, Bai M, Agnantis N：Brucella melitensis infection stimulates an immune response leading to Kikuchi-Fujimoto disease. *In Vivo* 17：51-53, 2003。
- 9) Heikens J, Tel W, van de, Stadt J, de Koning J, ten Napel CH.：Kikuchi's lymphadenitis：report of a Yersinia enterocolitica-associated case and an overview of aetiology and clinical outcome. *Neth J Med* 41：222-228, 1992。
- 10) Kikuchi M, Yoshizumi T, Nakamura H.：Necrotizing lymphadenitis：possible acute toxoplasmic infection. *Virchows Arch A Pathol Anat Histol* 376：247-253, 1977。
- 11) Aydogan T, Kanbay M, Uraldi C, Kaya A, et al.：Kikuchi-Fujimoto disease secondary to Entamoeba histolytica：case report. *J Infect* 53：171-173, 2006。
- 12) Charalabopoulos K, Charalabopoulos A, Papadopoulou CH, Papalimneou V：Giardia lamblia intestinalis：a new pathogen with possible link to Kikuchi-Fujimoto disease. An additional element in the disease jig-

- saw. *Int J Clin Pract* 58 : 1180-1183, 2004.
- 13) Georgios K, Georgios E, Spiros N et al. : Concurrent development of spontaneous pyomyositis due to staphylococcus epidermidis and Kikuchi-Fujimoto disease. *Intern Med*. 47 : 2139-43, 2008.
- 14) 吉田和秀, 重見英男, 坂本菜穂子ら : 深頸部膿瘍を来した壊死性リンパ節リンパ節炎の1症例, 日耳鼻感染症研究会誌, 14 : 26-29, 1996.
- 15) 吉成美子 : 亜急性壊死性リンパ節炎を思わせる寒性膿瘍 cold abscess の3例, 徳島市民病院医学雑誌, 8 : 65-69, 1994
- 16) Asano S, Akaike Y, Jinnouchi H, et al. : Necrotizing lymphadenitis : a review of clinicopathological, immunohistochemical and ultrastructural studies. *Hematol oncol*. 8 : 251, 1990
- 17) Song JY, Cheong HJ, Kee SY, et al. : Disease spectrum of cervical lymphadenitis : analysis based on ultrasound-guided core-needle gun biopsy. *J Infect* 55 : 310, 2007
- 18) Song JY, Lee J, Park JW, et al. : Clinical outcome and predictive factors of recurrence among patients with Kikuchi's disease. *Int J Infect* 13 : 322, 2009.

連絡先 : 紙谷祐衣

〒153-8581

東京都目黒区三田1-11-7

厚生中央病院 耳鼻咽喉科

TEL 03-3713-2141