

SOLITARY CUTANEOUS CHROMOBLASTOMYCOSIS OF THE ELBOW

肘関節部皮膚の孤立性黒色分芽菌症

CASE REPORT

症例報告

JACK D. KIRSHBAUM, M.S., M.D.



ATOMIC BOMB CASUALTY COMMISSION

国立予防衛生研究所 - 原爆傷害調査委員会

JAPANESE NATIONAL INSTITUTE OF HEALTH OF THE MINISTRY OF HEALTH AND WELFARE

TECHNICAL REPORT SERIES

業績報告書集

The ABCC Technical Reports provide the official bilingual statements required to meet the needs of Japanese and American staff members, consultants, advisory councils, and affiliated government and private organizations. The Technical Report Series is in no way intended to supplant regular journal publication.

ABCC業績報告書は、ABCCの日本人および米人専門職員、顧問、評議会、政府ならびに民間の関係諸団体の要求に応じるための日英両語による記録である。業績報告書集は決して通例の誌上発表に代わるものではない。

SOLITARY CUTANEOUS CHROMOBLASTOMYCOSIS OF THE ELBOW

肘関節部皮膚の孤立性黒色分芽菌症

CASE REPORT

症例報告

JACK D. KIRSHBAUM, M.S., M.D.



ATOMIC BOMB CASUALTY COMMISSION
HIROSHIMA AND NAGASAKI, JAPAN

A Cooperative Research Agency of
U.S.A. NATIONAL ACADEMY OF SCIENCES - NATIONAL RESEARCH COUNCIL
and
JAPANESE NATIONAL INSTITUTE OF HEALTH OF THE MINISTRY OF HEALTH AND WELFARE
with funds provided by
U.S.A. ATOMIC ENERGY COMMISSION
JAPANESE NATIONAL INSTITUTE OF HEALTH
U.S.A. PUBLIC HEALTH SERVICE

原 爆 傷 害 調 査 委 員 会

広島および長崎

米国学士院—学術会議と日本厚生省国立予防衛生研究所
との日米共同調査研究機関

(米原子力委員会、日本厚生省国立予防衛生研究所および米公衆衛生局の研究費による)

CONTENTS

目 次

Summary 要 約	1
Case Report 症例報告	1
Clinical History 臨床病歴	1
Pathology Findings 病理学的所見	1
Microscopic Description 顕微鏡的所見	1
Clinical Course 臨床経過	3
Discussion 考 察	3
References 参考文献	7
Figure 1. Photograph of the excised lesion from the elbow resembling a tumor mass	
図 肘関節部皮膚から剔除した腫瘤類似病変の写真.....	2
2. Epitheliomatous hyperplasia, diffuse inflammatory infiltration, and giant cells, some of which contain fungus organisms 上皮腫性過形成, 瀰漫性炎症性浸潤および一部に糸状菌が認められる巨細胞.....	2
3. Intra-epithelial abscess and a clump of organisms 上皮内膿瘍および菌塊.....	3
4. A single rete peg with epithelial hyperplasia 上皮過形成を伴う単独性の網突起.....	4
5. Organisms within giant cell and in the stroma arranged in clumps 巨細胞内および間質内において塊状に並んでいる菌.....	5
6. Septate division of the fungus organisms 糸状菌における中隔分裂.....	5

SOLITARY CUTANEOUS CHROMOBLASTOMYCOSIS OF THE ELBOW

肘関節部皮膚の孤立性黒色分芽菌症

CASE REPORT

症例報告

JACK D. KIRSHBAUM, M.S., M.D.

Department of Pathology
病 理 部

SUMMARY A 58-year-old Japanese farmer had a verruca-like granular lesion on the left elbow, which clinically was considered neoplastic by the referring physician. No bacteriologic studies were made prior to receiving the formalin fixed specimen in the ABCC Department of Pathology, Nagasaki. The changes in the skin were typical of chromoblastomycosis.

Keywords: Chromoblastomycosis, Fungi, Dermatitis verrucosa.

要 約 58歳の日本人農夫が左肘関節部皮膚に臨床的には新生物と考えられた疣状顆粒状病変を有していた。長崎 ABCC 病理部でホルマリン固定標本について検査が行なわれるまでは、細菌学的検査はなされていなかった。組織材料に認められた変化は定型的黒色分芽菌症であった。

CASE REPORT

Clinical History A Japanese male (MF [redacted]), age 58, had been a farmer for many years, and recently had worked as a grocery storekeeper. He first noticed a small eruption over the left elbow joint during the past 4 to 5 years. Since then it had enlarged. Examination disclosed a scar-like partially crusted elevation of the skin over the left elbow joint which measured 3.0×2.0cm. A total excision was done and the specimen was sent to the ABCC Pathology Department in Nagasaki.

Pathology Findings The specimen was received in formalin and consisted of an irregular flat piece of tissue, measuring 3.8×2.2×0.3cm (Figure 1). The surface was coarsely granular.

Microscopic Description The epidermis showed marked epitheliomatous hyperplasia (Figure 2). Abscesses were frequently noted within the epidermis and contained clumps of dark brown oval organisms (Figure 3), usually occurring in groups. The dermis

症例報告

臨床病歴 長年農業に従事していた58歳の日本人男性 (MF [redacted]) で、最近八百屋として働いていた。左肘関節部皮膚に4,5年前から小発疹のあることに気づいた。その後それは大きくなった。診察により、左肘関節部に3.0×2.0cm大の、癬痕様、一部痂皮化した皮膚隆起が認められた。この病変の全摘出が行なわれ、その標本は長崎 ABCC 病理部へ届けられた。

病理学的所見 標本は3.8×2.2×0.3cm大の、不規則な形状をした扁平組織片でホルマリンによって固定されていた (図1)。表面は粗顆粒状であった。

顕微鏡的所見 表皮は顕著な上皮腫様過形成を示していた (図2)。表皮内に多くの膿瘍を認め、その中に一般に群在する黒褐色、楕円形の菌塊を容れていた (図3)。真皮にはリンパ球、形質細胞、組織球および散在性異物型巨細胞による強度の浸潤が認められた。

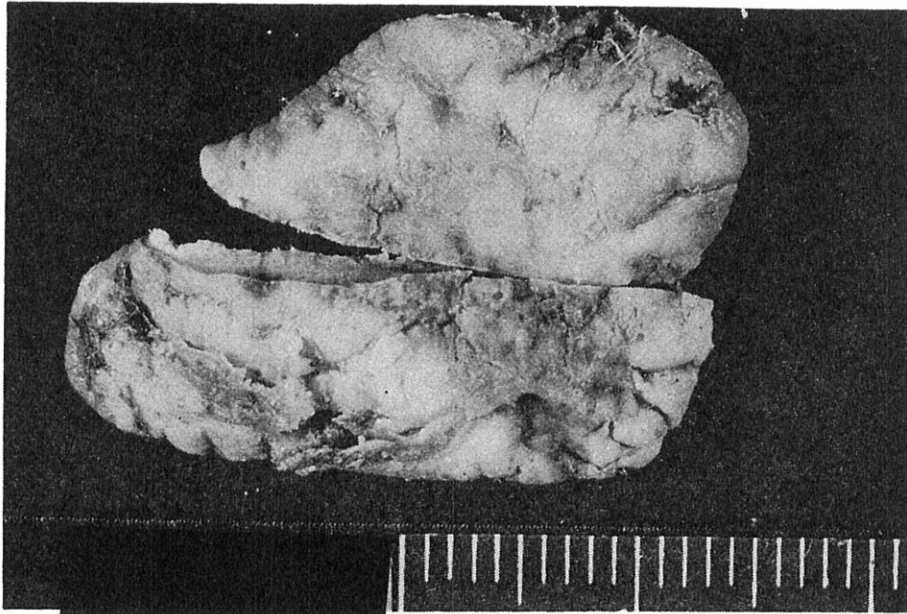


Figure 1. Photograph of the excised lesion from the elbow resembling a tumor mass.
図1 肘関節部皮膚から剔除した腫瘤類似病変の写真。



Figure 2. Note the epitheliomatous hyperplasia, diffuse inflammatory infiltration, and giant cells, some of which contain fungus organisms, H & E stain $\times 100$.
図2 上皮腫性過形成, 瀰漫性炎症性浸潤および一部に糸状菌を容れた巨細胞; ヘマトキシリン・エオジン染色, 100倍。

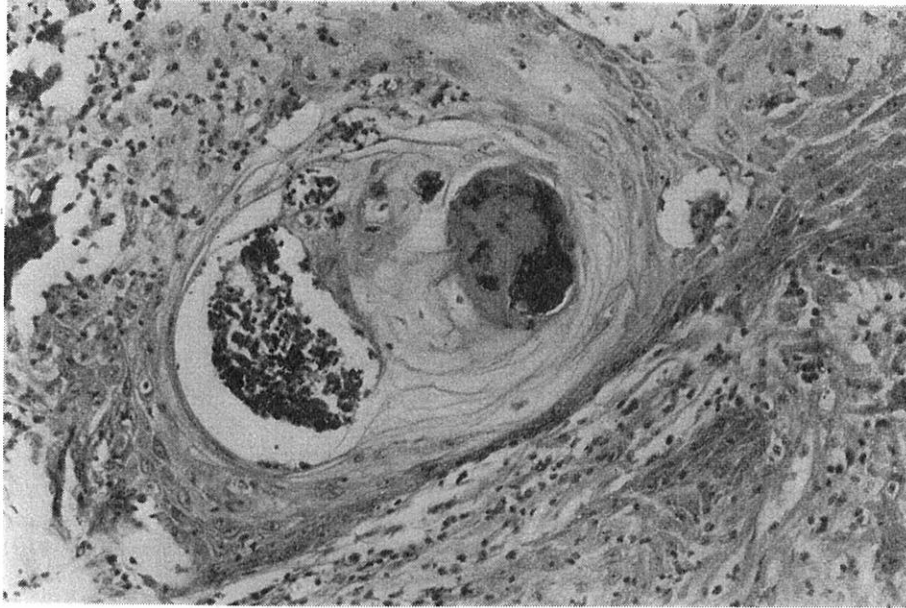


Figure 3. Intra-epithelial abscess and a clump of organisms, H & E stain $\times 250$.
 図3 上皮内膿瘍および菌塊；ヘマトキシリン・エオジン染色，250倍。

was heavily infiltrated with lymphocytes, plasma cells, histiocytes and scattered foreign body giant cells (Figure 4). The giant cells frequently contained oval dark brown organisms (Figure 5), identified as chromoblastomycosis. In one area the epidermis showed a group of fungus organisms with septate division (Figure 6).

Clinical Course The wound healed by primary union and the patient was lost to follow-up.

DISCUSSION

Chromoblastomycosis occurs chiefly in tropical and sub-tropical areas. The majority of cases have been reported from South America and Puerto Rico, but have also been noted in countries with a temperate climate, including Japan and the United States.

The infection has involved farmers and rural laborers and has followed injuries of the skin produced by contaminated wood or soil. The organisms are usually introduced into the skin by trauma, and have for the most part been confined to the surface of the body, particularly in the lower extremity rather than the upper. The disease begins from an

(図4). 巨細胞内には多くの場合楕円形，黒褐色の菌体が認められ(図5)，これは黒色分芽菌症と判定された。表皮の1か所に中隔分裂をともなう糸状菌の1群を認めた(図6)。

臨床経過 病変は第1癒合によって治癒し，その後患者は経過観察に来診しなくなった。

考 察

黒色分芽菌症は主として熱帯地方および亜熱帯地方に発生する。症例の大部分は南アメリカおよびプエルトリコから発表されているが，日本および合衆国を含む気候温暖な国にも認められている。

この感染症は，農夫および農村労働者に認められており，その菌に汚染された木材または土壌により皮膚が負傷したとき続発する。菌は一般に外傷により皮膚内に侵入し，患部は多くの場合体の表面に限られており，上肢よりは下肢に多く認められる。この疾患は創傷から発症し，ついで皮膚および皮下組織に疣状小結節を形成する。始発部位から広がるまでには，長年月

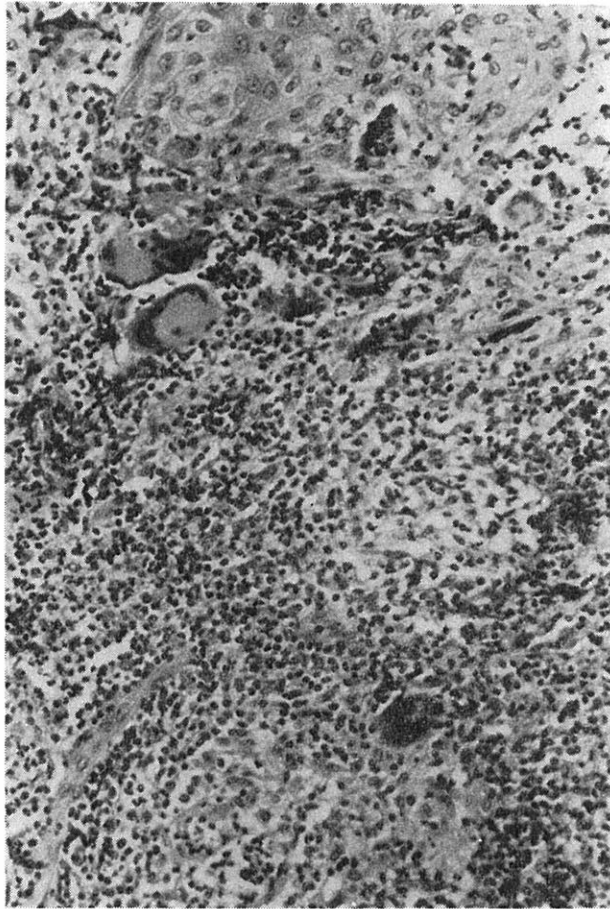


Figure 4. A single rete peg with epithelial hyperplasia and the cutis heavily infiltrated with lymphocytes, plasma cells and histiocytes. One of the giant cells is filled with organisms. H & E stain $\times 250$.

図4 上皮過形成をともなう単独の網突起ならびにリンパ球，形質細胞および組織球の強度の浸潤をともなう真皮．巨細胞の一つには菌が充満している；ヘマトキシリン・エオジン染色，250倍

infected wound and is followed by warty nodules in the skin and subcutaneous tissues. It may be present for many months or years before extending from its initial site.

The term *dermatitis verrucosa* has frequently been used, but since it is nonspecific, the more popular term *chromoblastomycosis* in current use has become acceptable and more descriptive of the condition. Although the lesions produced by the fungi occur most frequently on the extremities, all parts of the skin may be affected. No visceral involvement has been recorded. Cases of brain abscess and meningo-encephalitis have been reported by Binford, Thompson, and Gorham¹ and Duque.²

を要するようである。

疣状皮膚炎という病名がしばしば用いられてきたが、これは非特異的病名であるため、現在一般に通用している黒色分芽菌症という病名が承認されるようになったが、このほうが症状をより正しく表現している。糸状菌に起因するこの病変は四肢に発症することが最も多いけれども、皮膚のいずれの部分にも、発症することがあるようである。内臓が冒されたという記録はない。脳膿瘍および髄膜脳炎例がBinford, Thompson および Gorham¹ ならびに Duque² によって報告されている。

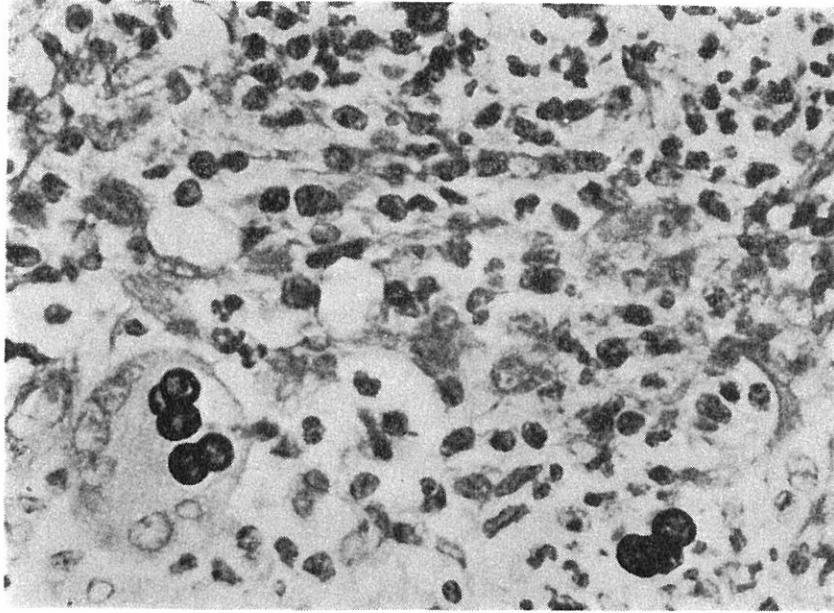
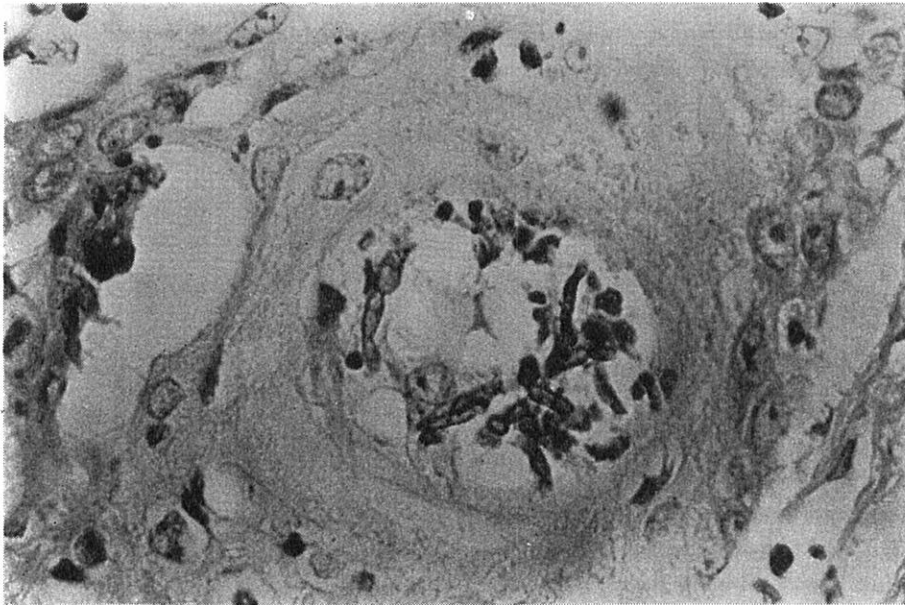


Figure 5. Organisms within giant cell and in the stroma arranged in clumps. H & E stain $\times 700$.

図5 巨細胞内および間質内における菌塊；ヘマトキシリン・エオジン染色，700倍。



Figur 6. Septate division of the fungus organisms. H & E stain $\times 700$.

図6 糸状菌における中隔分裂；ヘマトキシリン・エオジン染色，700倍。

The fungi usually isolated in chromoblastomycosis are *Phialophora verrucosa*, *Hormodendrum* (or *Fonseceae*) *pedrosoi* and *Hormodendrum* (of *Fonseceae*) *compactum*. *H. pedrosoi* and *H. compactum* each causes production of an antibody against the other, but *P. verrucosa* does not produce cross agglutination with the other two.

The fungi in tissues are either brown or black and the cells appear singly or in clusters. The cells are rounded and thick walled, and appear more numerous near the surface of the lesion, easily found free in the tissues, within intra-epidermal abscesses or within giant cells.

According to Conant and Martin³ the strains of fungi isolated from cases of chromoblastomycosis cause antibody formation when injected into rabbits and can be distinguished serologically and morphologically in cultures, but not in tissue sections. *Cladosporium* according to Duque² shows a close relationship of this genus to the group of fungi that cause chromoblastomycosis. *Fonseceae pedrosoi*, the most frequent etiologic agent of chromoblastomycosis was isolated by Fukushiro et al,⁴ from lesions in the brain of a girl who also manifested chromoblastomycosis of the skin. There appears to be an affinity of *C. trichoides* for the central nervous system.

All races are susceptible to chromoblastomycosis and males are infected more frequently than females. The majority of the infections are found in agricultural workers, i. e. farmers.

Emmons,⁵ and others have reported the isolation of fungi from soil pathogenic for man, and concluded that the contaminated soil was the source of infection.

Treatment usually consists of excision of small lesions, and X-ray therapy for larger ones. Amphotericin B. has been effective; otherwise, there is no specific treatment for this disease. There was no history of exposure to the A-bomb.

黒色分芽菌症において通常分離される糸状菌は *Phialophora verrucosa*, *Hormodendrum* (または *Fonseceae*) *pedrosoi*, および *Hormodendrum* (または *Fonseceae*) *compactum* である。 *Hormodendrum pedrosoi* および *Hormodendrum compactum* はそれぞれ相互抗体を産生するが、 *Phialophora verrucosa* は他の二つの菌に対して交叉凝集反応を示さない。

組織内における糸状菌は褐色または黒色で、菌体は単在または塊状をなしている。菌体は円形で、壁は厚く、病巣の表面近くに多数密集し、組織内、表皮の膿瘍内または巨細胞内に遊離した状態で認められる。

Conant および Martin³ によると、黒色分芽菌症例から分離された糸状菌株を家ウサギに注射すると抗体を産生し、かつ血清学および培養形態学的に鑑別することができるが、組織切片内のもは鑑別できないという。 Duque² によると、 *cladosporium* は、黒色分芽菌症の原因である糸状菌群と菌属的に密接な関係にある。最も頻繁に黒色分芽菌症の病因となる *Fonseceae pedrosoi* が、福代ら⁴ によって皮膚の黒色分芽菌症の1少女の脳の病巣から分離された。 *Cladosporium trichoides* は中枢神経系に対して親和性があるようである。

黒色分芽菌症は各民族に認められ、男性の感染率が女性のそれよりも大きい。感染例の大部分は、農村労働者すなわち農夫である。

Emmons⁵ およびその他の研究者は、ヒトに対して病原性を有する糸状菌を土壌から分離したと報告し、汚染された土壌が、その感染源であると結論した。

治療法としては、一般に小病巣に対しては剔除が、また大病巣に対しては X線療法が行なわれる。 Amphotericin B. は効果がある。しかし、このほかにはこの疾患に対しての特効的療法はない。この患者は原爆に被爆していない。

REFERENCES

参考文献

1. BINFORD CH, THOMPSON RK, GORHAM ME: Mycotic brain abscess due to *cladosporium trichoides*, a new species. Report of a case. *Am J Clin Pathol* 22: 535-42, 1952.
2. DUQUE O: Meningo-encephalitis and brain abscess caused by *cladosporium* and *fonseceae*. *Am J Clin Pathol* 36: 505-17, 1961.
3. CONANT NF, MARTIN DS: The morphologic and serologic relationship of the various fungi causing dermatitis verrucosa (*chromoblastomycosis*). *Am J Trop Med* 17: 553-77, 1937.
4. FUKUSHIRO R, KAGAWA S, NISHIYAMA S, TAKAHASHI H: Un cas de *chromoblastomycose cutanée* avec métastase cérébrale mortelle. *Presse Med* 65: 2142-3, 1957.
5. EMMONS CW: The isolation from soil of fungi which cause disease in man. *Trans NY Acad Sci* 14: 51-4, 1951.