〈症例報告〉

高齢者の右上葉肺尖部に病変を認めた肺犬糸状虫症の1例

土方 直也¹⁾³⁾ 浅沼 晃三²⁾ 佐藤新太郎³⁾
 原澤 慶次³⁾ 宮岡 啓介³⁾ 石津 英喜⁴⁾

要約 症例は75歳、男性。慢性胃炎、逆流性食道炎にて消化器外来へ定期通院中であったが、湿性咳嗽が遷延するため胸部X線撮影を施行。右肺尖部に結節影を認めた。胸部CTでは右S'aに最大径28mm大の境界明瞭で辺縁整の結節影を認めた。気管支鏡検査を実施したが診断を確定できず、胸腔鏡下に結節を切除した。術中迅速病理で炎症性肉芽腫の診断を得たため、部分切除のみで手術は終了した。術後の病理組織標本では結節中にフィラリア虫体と乾酪壊死を伴う肉芽腫を認め肺犬糸状虫症と確定診断した。肺犬糸状虫症は画像上、肺に結節影や腫瘍影を呈し、高齢者の胸部異常結節影における肺癌などの鑑別診断として稀ながら考慮すべき疾患であると考えられた。また、多くの報告では結節は下葉に認められることが多いが、本例では上葉肺尖部に病変を生じた貴重な1例と考えられた。

Key words : 高齢者, 肺犬糸状虫症, 胸腔鏡下手術, 肺尖部

(日老医誌 2011; 48:707-711)

緒言

今回我々は犬飼育歴のない高齢者の右上葉肺尖部に病変を認めた肺犬糸状虫症の1例を経験した。稀少な疾患ではあるが報告例が増加しており、高齢者の胸部異常陰影の鑑別において重要な疾患と考えられ報告する。特に肺癌との鑑別が問題となるが、病変の部位によっては肺結核や肺真菌症との鑑別も要すると思われた。

症例

症例：75歳、男性。

主訴：湿性咳嗽。

既往歴：特記すべき事項なし。

家族歴：父が硅肺。

生活歴：喫煙歴は20本/日を54年間。動物飼育歴は犬飼育歴を含めてなし。

職業歴：配送業に15年前まで従事していたが、以降は無職。

現病歴：慢性胃炎、逆流性食道炎にて消化器外来へ定

期通院中であったが、湿性咳嗽が遷延するため胸部X線撮影を施行。右肺尖部に結節影を認めた。胸部CTでは右S'aに最大径28mmの境界明瞭で辺縁整の結節影を認めた。気管支鏡検査を実施したが診断が確定できず、肺癌の可能性が否定できないため胸腔鏡下に結節を切除する目的で入院した。

入院時現症：意識レベルJCS I-1、身長164.5cm、体重57kg、体温36.3℃、血圧120/80mmHg、脈拍80回/分(整)、SpO₂ 96%、胸部聴診上は心音、呼吸音に異常はなし。

入院時検査成績：血液、生化学検査では異常を認めなかった。腫瘍マーカーはCEA 2.9 ng/ml (基準値5.0 ng/ml以下)、SCC抗原1.6 ng/ml (基準値1.5 ng/ml以下)、proGRP 41.1 pg/ml (基準値46.0 pg/ml以下)とSCC抗原が軽度高値を示した。喀痰細胞診断はclass I、有意な微生物は培養されなかった。

画像所見：胸部X線写真では右肺尖部に結節影を認めた(図1)。検診は未受検で、過去に比較しうる胸部X線写真は撮影されておらず経時的変化は評価不能であった。胸部CTでは、右S'aに最大径28mm大の境界明瞭で辺縁整の結節影を認めた(図2)。結節は均一で造影効果に乏しく縦隔、肺門リンパ節の腫脹は認めなかった(図3)。FDG-PETでは結節は内部および辺縁ともに有意な異常集積亢進は認めなかった(SUVmax; 0.53)。縦隔、肺門リンパ節および他の遠隔部位にも異

1) N. Hijikata : さいたま赤十字病院内科

2) K. Asanuma : 埼玉協同病院呼吸器外科

3) N. Hijikata, S. Sato, K. Harasawa, K. Miyaoka : 同呼吸器科

4) H. Ishizu : 同 病理科

受付日：2011.6.2, 採用日：2011.7.26

図1 胸部単純X線写真
右上肺野に結節影を認める(矢印)。

図2 胸部CT(肺野条件)
右上葉肺尖部S1に最大径28 mmの粗大孤立結節を認める。辺縁は比較的整で棘突起形成や収縮機転はサイズの割に乏しい。結節内部には空洞を認めない。

常集積は認めなかった。

気管支鏡所見：可視範囲内には異常所見は認めなかった。右B'a iiよりキュレット鉗子を使用して選択的に擦過細胞診および洗浄細胞診を施行するも異常所見は認めなかった。

入院後経過：CT所見やFDG-PET所見からは非典型的ではあるものの肺癌の疑いが完全に否定できず、その後の対応につき十分に検討した結果、本人が手術を希望したため外科的切除を行った。吸入および静脈麻酔併用による全身麻酔下に分離肺換気にて胸腔鏡下手術を施行した。術後には肺癰による右気胸が遷延したが徐々に改

図3 胸部CT(造影縦隔条件)
結節は均一で造影効果に乏しい。縦隔、肺門リンパ節の腫脹は認めない。

図4 切除標本
最大径28 mmの単結節病変で、病変の境界は明瞭である。断面は、内部が黄白色、充実性である。

善し術後11日目に独歩で退院した。

手術所見：右S'aの結節は容易に確認できた。結節表面は黄色調で、鉗子で把持して肺部分切除を施行した。術中迅速病理にて炎症性肉芽腫の診断を得て、部分切除を施行し手術を終了した。

摘出標本(図4)：最大径28 mmの境界明瞭な単結節病変であった。

術後病理組織所見(図5)：腫瘍全体が壊死組織の充満する肉芽腫病変であり、腫瘍の中心部に位置する肺動脈内に糸状の虫体の構造物による閉塞があり限局性の肺梗塞を示した。非腫瘍部には反応性の胸膜肥厚があるもその他に著変はなく、TTF-1, CD34, CD31, 第VIII因子, サイトケラチンなどの免疫染色は陰性で悪性所見は認めなかった。

図5 病理組織所見 (HE 染色)

腫瘍全体が壊死組織の充満する肉芽腫病変であり、腫瘍の中心部に位置する肺動脈内に糸状の虫体の構造物 (矢印) による閉塞があり限局性の肺梗塞を示す。非腫瘍部には反応性の胸膜肥厚があるもその他に著変はなく、TTF-1, CD34, CD31, 第 VIII 因子, サイトケラチンなどの免疫染色は陰性で悪性所見は認めない。

考 察

肺犬糸状虫症 (*Dirofilaria immitis*) は主として終宿主である犬の右心系に寄生するミクロフィラリアを中間宿主の蚊が媒介して体内で感染幼虫となり、蚊がヒトを刺咬した際に感染する比較的稀な人畜共通感染症である。ヒトは好適な宿主ではないため感染しても成熟して成虫になれず皮下組織内や体内を移動中に死滅し、死滅した虫体の一部が血行性に肺に至って末梢肺動脈内に塞栓し梗塞巣や肉芽腫を形成するとされる¹⁾。虫体に比して変性壊死する範囲が広いことや必ずしも肺血管の栄養領域と関連した病変の広がりを示さず虫体の塞栓部位より離れた部位にも血管炎の所見がみられることなどから虫体の壊死物質に対する抗原抗体反応の関与も示唆されている²⁾。本症の発症には犬飼育歴は無関係とされ、むしろ生活環境における犬の数や犬のフィラリア感染率、媒介蚊の密度によると報告されている³⁾。本例はこれまでに犬飼育歴はなく家族の感染については不明であった。また、本症はほとんどが無症状であり検診や他疾患の検査中に偶然に見つかることが多く⁴⁾、本例においても湿性咳嗽を主訴に検査がなされたが、その症状の程度は非常に軽度であった。

本邦では1969年に吉村らが本症を初めて報告して以来、その報告数は増加しており、その数は現在では130例をこえている。しかし、75歳以上の高齢者の報告は決して多くはない。櫻井らは、本邦で報告された117例

の肺犬糸状虫症の考察の中で、年齢は17歳~80歳に分布し平均年齢は59.1歳であったとしている⁵⁾。別の39例の報告でも8歳~80歳に分布し平均年齢は58歳であったとしている⁶⁾。しかし、これには後に述べるように本症の確定診断の多くが外科的切除によってなされているため、確定診断の得られていない本症の75歳以上の高齢者が多く存在する可能性がある。82歳の高齢者の報告例もあり⁷⁾、本例は高齢者の胸部異常陰影の鑑別において稀ながら考慮すべき重要な疾患であることを示唆する1例と考えられた。

本症と確定診断されれば虫体は既に死滅しているため増悪することがなく治療は一般的に不要であることや、特に高齢者の場合には外科的手術が困難な場合も多いため、いかに低侵襲で診断するかも課題である。しかし、より低侵襲の診断方法である血清抗体価を測定する免疫学的検査や経気管支肺生検、経皮的肺生検はいずれも正診率が低い。また、胸部CTによる鑑別については、肺犬糸状虫症のCT所見の特徴として塚田らは、胸膜直下に好発する胸膜変化を認めない直径2 cm前後の辺縁整の孤立結節影と報告している⁸⁾。また、1998年~2004年に本邦で報告された24例の肺犬糸状虫症の文献的検討でも83%が孤立結節影を呈し、95%が30 mm未満のサイズであったと報告している⁹⁾。しかし、辺縁不整でspiculationや胸膜陥入像を呈する症例の報告もあり¹⁰⁾、CT所見のみで診断を下すことは肺癌の鑑別においても非常に困難である。肺癌との鑑別に利用されることも多いFDG-PETにても陽性となる症例が報告されており¹⁰⁾¹¹⁾、逆に、FDG-PET陰性の肺癌の報告もある¹²⁾。従って、外科的切除により得られた病理組織標本での虫体の存在により確定診断がなされることが多い現状にある。

本例の場合には病変の部位にも特徴があった。これまでの報告では右下葉の胸膜直下に病変を認めることが多いとされるが^{5)13)~15)}、Fliederらは39例に認められた41の結節の分布について考察しており、右肺31 (76%)、左肺10 (24%)で右肺に多く、また、右上葉8 (20%)、中葉4 (10%)、右下葉19 (46%)と右下葉に多く認められたと報告している⁶⁾。櫻井らも117例の検討の中で、右肺87例、左肺34例とやはり右肺に多く、右上葉27例、中葉5例、右下葉55例と右下葉に多くみられたと報告している⁵⁾。本例は気管支鏡での鉗子アプローチに非常に難渋した右上葉の肺尖部に病変を認めており、画像にて結節の部位が具体的に確認できる報告にて、本例と同様に肺尖部に結節を認めたものはなかった。

高齢者の上葉肺尖部に結節影を認めた場合には肺癌のみならず結核腫などの肺抗酸菌感染症や肺真菌症との鑑

別が重要となる。病理学的にともに壊死や肉芽腫を形成するために画像所見が非常に類似する例も考えられ、非結核性抗酸菌症との鑑別を要した肺犬糸状虫症の報告もある¹⁶⁾。櫻井らは117例中18例、15.4%に空洞形成が認められたと報告しており⁵⁾、空洞形成を伴う肺抗酸菌感染症や肺真菌症との鑑別がより重要になる場合が考えられ、それを支持する報告もある¹⁷⁾。自施設および他施設の放射線専門医8名の本例の胸部CTの読影では鑑別診断に肺犬糸状虫症を挙げた専門医はいなかった。

本例は今までに報告されている好発部位とは異なる上葉肺尖部に肺病変をきたした高齢者の肺犬糸状虫症例であり、高齢者の胸部異常陰影の鑑別疾患として肺癌や肺抗酸菌感染症、肺真菌症以外にも稀ながら考慮すべき疾患である。

利益相反 (COI)

本論文に関して、開示すべき利益相反状態は存在しない。

文 献

- Asimacopoulos PJ, Katras A, Christie B: Pulmonary dirofilariasis. The largest single-hospital experience. *Chest* 1992; 102: 851-855.
- Hiroshima K, Iyoda A, Toyozaki T, Fujisawa T, Aosai F, Kobayashi M, et al: Human pulmonary dirofilariasis: report of six cases. *Tohoku J Exp Med* 1999; 189: 307-317.
- Milanez de Campos JR, Barbas CS, Filomeno LT, Fernandez A, Minamoto H, Filho JV, et al: Human pulmonary dirofilariasis: analysis of 24 cases from Sao Paulo, Brazil. *Chest* 1997; 112: 729-733.
- Echeverri A, Long RF, Check W, Burnett CM: Pulmonary dirofilariasis. *Ann Thorac Surg* 1999; 67: 201-202.
- 櫻井 淳, 郷原英夫, 田尻展久, 安藤由智, 丸山修一郎, 横山伸二ほか: 健診で発見された肺犬糸状虫症の1例 本邦報告117例の集計. *臨床放射線* 2006; 51: 169-173.
- Flieder DB, Moran CA: Pulmonary dirofilariasis: a clinicopathologic study of 41 lesions in 39 patients. *Hum Pathol* 1999; 30: 251-256.
- Bielawski BC, Harrington D, Joseph E: A solitary pulmonary nodule with zoonotic implications. *Chest* 2001; 119: 1250-1252.
- 塚田 博, 佐藤敏輝, 森田哲郎: 肺犬糸状虫症の1例: HRCT 画像所見を中心に. *臨床放射線* 1996; 41: 689-692.
- Miyoshi T, Tsubouchi H, Iwasaki A, Shiraishi T, Nabeshima K, Shirakura T: Human pulmonary dirofilariasis: a case report and review of the recent Japanese literature. *Respirology* 2006; 11: 343-347.
- 井貝 仁, 垂水晋太郎, 橋本新一郎, 張 性洙, 中野淳, 奥田昌也ほか: FDG-PET で陽性を示し肺癌との鑑別が困難であった肺犬糸状虫症の1例. *日呼外会誌* 2007; 21: 91-94.
- Moore W, Franceschi D: PET findings in pulmonary dirofilariasis. *J Thorac Imaging* 2005; 20: 305-306.
- 上原浩文, 加地苗人, 加藤達哉: cT2 充実性結節を呈しながら FDG-PET 陰性であった肺腺癌の2例. *日呼外会誌* 2008; 22: 169-174.
- Ohshiro Y, Murayama S, Sunagawa U, Nakamoto A, Owan I, Kuba M, et al: Pulmonary Dirofilariasis: computed tomography findings and correlation with pathologic features. *J Comput Assist Tomogr* 2004; 28: 796-800.
- Ciferri F: Human pulmonary dirofilariasis in the United States: a critical review. *Am J Trop Med Hyg* 1982; 31: 302-308.
- 谷口暁彦, 伊藤 亘, 吉本静雄, 筒井英太, 渡辺恭子, 山本良一ほか: 胸腔鏡下に切除した肺犬糸状虫症の1例. *日胸* 2005; 64: 955-960.
- 新美 岳, 佐藤滋樹, 前田浩義, 山田典子, 小栗鉄也, 阿知和宏行ほか: 非結核性抗酸菌症と鑑別を要した犬糸状虫症の1例. *日呼吸会誌* 2006; 44: 394-398.
- Kunst H, Mack D, Kon OM, Banerjee AK, Chiodini P, Grant A: Parasitic infections of the lung: a guide for the respiratory physician. *Thorax* 2011; 66: 528-536.

A case of pulmonary dirofilariasis with a single nodule on an apical lesion of the right upper lobe

Naoya Hijikata¹⁾³⁾, Kouzo Asanuma²⁾, Shintaro Sato³⁾, Keiji Harasawa³⁾, Keisuke Miyaoka³⁾ and Hideki Ishizu⁴⁾

Abstract

A 75-year-old man with chronic gastritis and gastro-esophageal regurgitation syndrome was admitted to our hospital complaining of continuous productive cough, and an abnormal shadow was noted on a chest X-ray film. Chest computed tomography revealed a nodule 2.8 cm in diameter with a regular margin on the right apex. Fiberoptic bronchoscopy was performed, but did not yield a definitive diagnosis. We suspected primary lung cancer, and therefore, lung partial resection was performed under thoracoscopic surgery. The intraoperative pathological findings revealed inflammatory granuloma with necrosis, and pulmonary dirofilariasis was finally diagnosed.

Pulmonary dirofilariasis is an important differential diagnosis in elderly patients with a chest abnormal nodular shadow. Lesions have been reportedly observed in the peripheral portion of the right lower lobe in many previous reports. However, in this case, a nodular lesion was noted in the right apex.

Key words: *Elderly patient, Human pulmonary dirofilariasis, Thoracoscopic surgery, Pulmonary apical lesion*
(Nippon Ronen Igakkai Zasshi 2011; 48: 707–711)

-
- 1) Division of Internal Medicine, Saitama Red Cross Hospital
 - 2) Division of Respiratory Surgical Medicine, Saitama Kyoudo Hospital
 - 3) Division of Respiratory Medicine, Saitama Kyoudo Hospital
 - 4) Division of Pathology, Saitama Kyoudo Hospital