肝単包虫症を親子に認めた症例

畑 諒祐¹⁾ 遠山 峰子¹⁾ 市村 佳彦¹⁾ 澤田 有美¹⁾ 金子 正彦¹⁾

A case of echinococcosis of the liver involving parent and child

Ryosuke HATA¹⁾ Mineko TOYAMA¹⁾ Yoshihiko ICHIMURA¹⁾ Yumi SAWADA¹⁾ Masahiko KANEKO¹⁾

1) Department of Clinical Laboratory, Osaka Red Cross Hospital (5-30, Fudegasaki-cho, Tennouji-ku, Osaka-shi, Osaka, 〒543-8555, Japan)

Summary

Echinococcosis is a disease in which a cystic lesion develops mainly in the liver. It is caused by exposure to eggs of *Echinococcus multilocularis* and *E. granulosus*. Fourteen years ago, we reported a patient with unilocular hydatidosis of the liver in our hospital. This time, we report a unilocular liver cyst in his mother. Based on the familial history and magnetic resonance imaging (MRI) findings, we suspected echinococcosis, and cystectomy was conducted. In Japan, *E. granulosus* is very rare; therefore, our experience is limited. It is very important to cooperate with specialized laboratories who have encountered parasites from foreign countries and to examine other members of an affected patient's family.

キーワード

エキノコッカス症 肝嚢胞 単包虫 MRI 中間宿主

ヒトにおけるエキノコッカス症は *Echinococcus multilocularis* (多包条虫) および *Echinococcus granulosus* (単包条虫) から排泄される虫卵に曝露された後、主に肝臓に幼虫による嚢胞性病変を形成する疾患で、それぞれ多包虫症、単包虫症と呼ばれている。*E. granulosus* の成虫はわが国には生息していないと考えられ、感染症法の下で、2001 年からの 10 年間に単包虫症の届け出はわずか 13 例であり、すべては輸入症例と思われる。当院では、14 年前に肝単包虫症例を経験していたが¹⁾、今回当該患者の母親にも肝臓に包虫の寄生を認め、親子に肝単包虫症を発症したまれな症例を経験したので報告する。

I 症 例

患者：50 歳代女性、中国黒竜江省出身、16 年前より日本在住。

家族歴：14 年前、当院において患者の長男が肝単

包虫症の診断を受けている。当時長男以外の家族にも CT 検査を施行したが、包虫症の所見を認める者はいなかった。

既往歴：特記すべき既往歴なし。

現病歴：水腎症を契機に子宮頸癌の診断に至り、当院産婦人科で手術を受けた。術前検査において肝臓に嚢胞性病変を指摘され、精査加療目的に当院消化器内科へ紹介となった。

身体所見：血圧 134/74 mmHg、脈拍 60 回/分、体温 36.0℃、腹壁平坦、軟、腹痛なし。

臨床経過：消化器内科受診後に行われた MRI 検査において通常の肝嚢胞とは異なる所見を示し、エキノコッカス症が疑われた。肝嚢胞切除術が施行され、術後経過は良好であり、現時点で 12 か月間再発も認めない。

1) 大阪赤十字病院臨床検査科微生物検査室 (〒543-8555 大阪府大阪市天王寺区筆ヶ崎 5-30)
(平成 25 年 4 月 8 日受付・平成 25 年 6 月 18 日受理)

II 各種検査所見

1. 血液検査

表 1 参照。特筆すべき検査異常を認めず，好酸球増多もなかった。

2. 腹部超音波検査

B モードにて肝 S7 に 3.8 cm の嚢胞性腫瘤を認めた。内部には不整形の充実性部分や，高周波プローブの観察では石灰化様高エコーを伴っているように観察された。腫瘤内側にも隣接する約 1 cm の腫瘤を認めた(図 1-a)。上記腫瘤に対してソナゾイド造影エコー検査を実施したところ，腫瘤内部に染色はみられず，血流のない腫瘤と思われた。肝 S3 にも肝臓からやや突出するように 1.4 cm の低エコー結節を認めた。こちらは嚢胞性というよりも充実性に観察された(図 1-b)。

3. 造影 CT 検査

肝 S7 に嚢胞，その内側に隣接して内部に石灰化を

図 1-a 腹部超音波画像：肝 S7

図 1-b 腹部超音波画像：肝 S3

表 1 入院時血液検査

生化学検査		血液検査	
CRP	<0.2 mg/dl	WBC	47.9 $\times 10^3/\mu l$
GLU	101 mg/dl	Neut	47.0 %
TP	7.7 g/dl	Lymph	44.7 %
ALB	4.4 g/dl	Mono	7.5 %
T-BIL	0.5 mg/dl	Eosino	0.6 %
AST	23 U/l	Baso	0.2 %
ALT	35 U/l	RBC	471 $\times 10^4/\mu l$
ALP	287 U/l	Hb	14.0 g/dl
γ -GT	36 U/l	Ht	40.9 %
ch-E	310 U/l	MCV	86.8 fl
LD	158 U/l	MCH	29.7 pg
Na	140 mEq/l	MCHC	34.2 %
K	4.5 mEq/l	PLT	22.2 $\times 10^4/\mu l$
Cl	105 mEq/l	凝固検査	
BUN	14.9 mg/dl	PT sec	11.3 sec
CRE	0.6 mg/dl	PT %	104 %
免疫学的検査		PT INR	0.98
AFP	2.8 ng/ml	APTT	26 sec
PIVKA-2	10 mAU/ml	HPT	170 %

伴う小嚢胞を認めた(図 2)。また，肝 S3 にも小嚢胞を認めた。

4. MRI 検査

T2 強調像にて肝 S7 に高信号を呈する嚢胞性の腫瘤を認め，末梢側に位置する腫瘤は内部に不均一な膜状，隔壁様の低信号を認めた。上記病変の内側にも小嚢胞が認められ，内部は石灰化を反映していると思われる結節状の低信号を認めた(図 3)。また，肝 S3 にも小嚢胞を認めた。

図 2 CT 画像

図3 MRI画像

図4 切除嚢胞

5. 肝嚢胞切除標本所見

手術により計3個の嚢胞が摘出された(図4)。嚢胞は膠状で柔らかく、内部は淡黄色の嚢胞液で満たされていた。嚢胞液を直接無染色で鏡検したところ、無数の包虫砂(原頭節)を認め(図5)、U 励起蛍光顕微鏡観察にて包虫砂の鉤に自家蛍光が確認された(図6)。

6. 病理学的所見

包虫嚢胞のHE染色標本にて典型的な包虫壁は認められたが、内部の娘嚢胞や包虫砂の多くは変性像を呈していた(図7)。

III 考察

E. multilocularis の分布地は、ドイツ、アラスカ、ロシア、日本(北海道)などの北半球に限られているの

図5 嚢胞内容液無染色像(×100)

図6 U 励起蛍光顕微鏡像

図7 単包虫の包壁および内部の娘嚢胞

に対し、*E. granulosus* は比較的温暖な牧畜地域を中心に、中国、オーストラリア、地中海沿岸など世界中に分布している。両者の終宿主は類似しており、キツネやイヌなどが挙げられる。中間宿主は *E. multilocularis* は野ネズミ等のげっ歯類が多く、*E. granulosus* はヒツジ、ウマ、ウシなどである。ヒトもそれぞれ

の中間宿主になり得るが終宿主にはなり得ず、ヒトからヒトへの感染はない。

終宿主から排出された虫卵がヒトに摂取されると、腸管内で孵化し、幼虫は腸壁に侵入、血行性またはリンパ行性に肝、肺、脳などの諸臓器に運ばれる。多くは死滅するが、肝では約 60～70% が生き残り、發育して包虫となる²⁾。包虫は数年から 10 年以上かけて徐々に肥大し、直径 20 cm に達することもある。中間宿主体内の包虫の一部が終宿主に摂取されると、約 7 週間を要して成虫となり、生活サイクルを完結する³⁾。

ヒトにおいては、包虫に感染してもまったくの無症状に経過し、包虫が大きくなって初めて発見されるケースが多い。結合組織からなる被膜をもつ包虫は徐々に肥大し、上腹部、季肋部の不快感や周囲への圧迫症状、発熱、黄疸などの胆管炎症状等を呈する⁴⁾。

画像診断において包虫は、通常の良性嚢胞、膿瘍、良性もしくは悪性腫瘍との鑑別が難しいとされている。本症例患者においても子宮頸癌の術前検査の際、偶然に肝臓の嚢胞を認めたものの、腹部超音波検査や CT 検査においては嚢胞性病変と報告された。自覚症状に乏しく、血液学的検査も異常を示さなかったが、MRI 検査においてエキノコッカス症に特徴的な膜状、隔壁様構造を認めたことよりエキノコッカス症の疑いが強まった。

中国は *E. granulosus* の主要な分布地で、虫卵に曝露されるリスクの高い環境下にある。中国在住時に野外犬の飼育歴や飲料水が井戸水であったことなどが問診により判明しており、本症例の親子は生活をとともにしていた中国在住時での感染と推測される。そのため、エキノコッカス症を診断した場合には、生活史を踏まえたうえで家族および近縁者の検査も望まれる。ただし、患者長男が単包虫症を発症した際に行われた患者の CT 検査では、肝臓、肺、脳に異常を認めていなかったことから、継続的な検査が必要であったと考える。

また、2 人の診断に 14 年の差が生まれたことは興味深い事実であった。患者長男の包虫は母親よりも大きく、上腹部痛、発熱といった自覚症状も認めた¹⁾。2 人は時期を隔てて感染した可能性も考えられるものの、生活史を踏まえ、ほぼ同時期の感染と考えるな

らば、大人と子供では包虫の發育に違いがある可能性が示唆された。

エキノコッカス症の診断は、画像所見によるほか、免疫血清学的検査があり、伊藤らは多包虫と単包虫に共通の抗原 (Antigen B) と多包虫に特異的な抗原 (Em 18) に対するそれぞれの抗体応答により、多包虫症と単包虫症を鑑別可能であると報告している⁵⁾。また、診断および治療としての嚢胞穿刺や経皮的ドレナージ術は、腹腔内に漏出した嚢胞内容液によりアナフィラキシーショックを起こす恐れがあるため、禁忌とされているが⁶⁾、肝単包虫症では嚢胞と胆管に交通がない場合に限り、包虫内容物をドレナージした後、エタノールを注入し内容物を死滅させ、再吸引する経皮的治療 (puncture, aspiration, injection, re-aspiration: PAIR) が近年 WHO から推奨されている⁷⁾。

E. granulosus は日本には存在しておらず輸入感染症と位置づけられており、単包虫症を経験している施設は数少ない⁸⁻¹¹⁾。われわれも、外部医療機関に嚢胞の診断を依頼することで、確定診断を得ることができた。寄生虫に限らず、業務上自施設内での検査には限界がある。まれな疾患の診断に対して各分野の専門機関との連携、およびその関係を常時構築しておくことの大切さを改めて実感した。

IV 結 語

われわれは、子宮頸癌の術前スクリーニング検査時に発見された肝単包虫症例を経験した。診断に際しては、画像所見のほか患者の問診結果や家族歴、生活史が大変参考となった症例であった。エキノコッカス症の経験のある施設は少なく、エキノコッカス症に精通している外部医療機関との連携が重要であると考ええる。

本論文の要旨は、第 52 回日臨技関西支部医学検査学会 (2012 年 9 月、和歌山) において発表した。

謝辞

今回、投稿するにあたりご協力くださいました大阪市立大学大学院医学研究科講師 木俣 勲先生、大阪赤十字病院放射線診断科部副部長 小山 貴先生、同病理診断科部副部長兼臨床検査科部副部長 若狭朋子先生に深謝いたします。

■文献

- 1) 有本 明ほか：肝単包虫症の1例，外科 2000；62：479-481.
- 2) 山口富雄ほか：臨床寄生虫学カラーアトラス，第一版，62-69，南江堂，東京，1980
- 3) 吉田幸雄ほか：図説 人体寄生虫学，第三版，174-177，南山堂，東京，1978
- 4) Ivan P *et al.*：Hydatid disease：Radiologic and pathologic features and complications, RadioGraphics 2000；20：795-817.
- 5) 伊藤 亮，石川祐司：単包虫症，多包虫症の免疫学的診断，Med Technology 2002；30：97-103.
- 6) 森下哲夫，加納六郎：新寄生虫病学，第九版，140-144，南山堂，東京，1979
- 7) WHO Informal Working Group on Echinococcosis：Guidelines for treatment of cystic and alveolar echinococcosis in humans, WHO Bulletin OMS 1996；74：231-242.
- 8) 畠山優一ほか：肝単包虫症の1切除例，手術 2002；56：819-823.
- 9) 小淵岳恒ほか：肝エキノコックス単包虫症の1手術例，日本消化器外科学会雑誌 2004；37：1834-1838.
- 10) 吉川智宏ほか：肝単包虫症の1例，日本消化器外科学会雑誌 2005；38：1429-1433.
- 11) 山下奈美子ほか：肝単包虫症の1例，日本消化器がん検診学会雑誌 2010；48：61-66.