顎下部膿瘍から Lemierre 症候群に至ったと考えられた 1 例

深川 智恵・古土井春吾・高橋 英哲

山田 周子・渋谷 恭之・古森 孝英

A case of Lemierre syndrome arising from a submandibular abscess

FUKAGAWA Chie・FURUDOI Syungo・TAKAHASHI Hidenori

YAMADA Chikako・SHIBUYA Yasuyuki・KOMORI Takahide

Abstract: Lemierre syndrome is a potentially life-threatening disease caused by an acute oropharyngeal infection with secondary septic thrombophlebitis of the internal jugular vein, frequently associated with abscess formation in distant organs.

We report the case of a 78-year-old woman who received surgical therapy, chemotherapy, and radiation therapy for malignant lymphoma in 2001. She visited our hospital because of a swelling and pain of the left submandibular region in August 2009. The patient was immediately hospitalized to control the pain and infection. PET images showed tracer uptake in the lung. Bilateral multiple septic emboli of the thorax were detected on CT. On the basis of these findings, Lemierre syndrome was diagnosed. The patient was treated with antibiotics intravenously, and surgical drainage was performed. All symptoms improved, and she was discharged after 32 days.

Key words: Lemierre syndrome (レミエール症候群), infection (感染症), abscess (膿瘍), submandibular region (顎下部)

緒 言

Lemierre 症候群は扁桃・咽頭炎や口腔感染症に引き続いて、内頸静脈の血栓性静脈炎、肺などの遠隔臓器膿瘍を併発する全身感染症である。診断が遅れると重症敗血症から致死的になりうるため、鑑別診断を含めての知識が重要である。今回われわれは、顎下部膿瘍から Lemierre 症候群に至ったと考えられた 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者：78 歳，女性。

初 診：2009 年 8 月。

主 訴：左側顎下部の腫脹・疼痛。

既往歴：2001 年に B 細胞性悪性リンパ腫にて左側顎下部腫瘍摘出術，CHOP 療法 6 コース，頸部に放射線照射 40Gy を施行された。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2009 年 8 月より左側顎下部に違和感を自覚。腫脹・疼痛を認め、徐々に増悪したため当科を初診した。

現 症：

全身所見：意識清明で、血圧 110/60mmHg，脈拍 72/分，体温 35.7℃，酸素飽和度 98% であった。

口腔外所見：左側顎下部に弾性硬のびまん性腫脹と発赤を認め、同部に顎下部腫瘍摘出術による手術痕がみられた（写真 1）。また、同部から左側胸鎖乳突筋にかけて著明な圧痛を認めた。

口腔内所見：口腔粘膜は正常で、感染源を疑う菌は認めなかった。

臨床検査所見：白血球数は 8200/ μ l と正常範囲であったが、CRP は 5.5mg/dl と高値を示した（表 1）。

画像所見：左側下顎部に境界明瞭な不透過像が認められたが、下顎骨の膨隆はなく、周囲透過像も認めないことから炎症の誘因とは考えにくく、化骨性線維腫やセメント質腫の残存などが考えられた（写真 2）。

臨床診断：左側顎下部膿瘍の疑い。

処置および経過：消炎・鎮痛を目的に入院し、SBT/ABPC 1.5g を 1 日 2 回（計 3g）の点滴静注投与を開始した。悪性リンパ腫の再発および原発不明癌の鑑別のため PET 検査を施行し、左側顎下部および両側肺野への集積を

神戸大学大学院医学研究科外科系講座口腔外科学分野
(主任：古森孝英教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kobe University
Graduate School of Medicine (Chief: Prof. KOMORI Takahide)

受付日：2010 年 1 月 20 日

採択日：2010 年 7 月 27 日

写真1 初診時口腔外写真

左側顎下部に弾性硬のびまん性腫脹と発赤を認めた。

写真3 PET像

左側顎下部および、両側肺野への集積を認めた。

写真2 初診時パノラマX線写真

左側下顎部に境界明瞭な不透過像が認められたが、下顎骨の膨隆はなく、周囲透過像も認めないことから炎症の誘因ではないと考えられた。

表1 臨床検査所見

WBC	8.2×10 ³ /μl	RBC	391×10 ⁴ /μl
Neutro	72.7%	Hb	12.0g/dl
Baso	1.9%	Ht	36.6%
Eos	0.1%	CRP	5.55mg/dl
Mono	7.6%	AST	33IU/l
Lymph	17.7%	LDH	249IU/l
		Cr	0.87mg/dl

写真4 MRI像（T1 前頭断, T2 水平断）

T1 低信号・T2 高信号の病変。

明らかに骨へと浸潤している像はなかった。

認めた（写真3）。頸部MRIでは、左側下顎骨周囲にT2強調像で高信号、T1強調像で低信号を呈し、辺縁および周囲軟部組織には増強効果がみられる病変が確認され、膿瘍が疑われた（写真4）。そこで、左側顎下部の切開排膿処置を行ったところ黄白色の膿汁を認めたため、細菌検査を行うとともにドレーンガーゼを挿入し、その後も洗浄を継続した。膿汁の細菌検査では腸内細菌である *Hafnia alvei* が検出された。さらに、肺の精査のため撮影した胸部CT所見にて左側肺下葉・両側肺底部末梢・両側肺尖部・両側肺上

写真5 胸部CT像

不整形結節性空洞を認め、膿瘍形成が疑われた。

写真6 退院時口腔外写真
左側頸下部の腫脹・発赤は消退した。

写真7 胸部 CT 像
肺多発結節空洞病変の癒痕化を認めた。

図1 臨床経過
初診時から退院までの臨床経過

Hafnia alvei および嫌気性菌をターゲットとして SBT/ABPC の点滴投与量を増やし、倍量の 3g を 1 日 3 回 (計 9 g) 開始した。4 日目に薬疹と思われる症状が発現したため CPFX 0.6g と CLDM 1.8g/日に変更し、計 21 日間投与した結果、左側頸下部腫脹は徐々に消退した (写真 6)。血液検査にて WBC : 4600/ μl , CRP : 0.49mg/dl と消炎傾向を認め、胸部 CT 所見にて肺多発結節空洞病変の癒痕化が確認されたため、第 32 病日に軽快退院となった (写真 7, 図 1)。退院後、11 か月が経過した現在まで炎症の再燃は認められていない。

考 察

Lemierre 症候群は口腔咽頭領域の感染症から副咽頭

葉背側の不整形結節性空洞を認め、膿瘍形成が疑われた (写真 5)。そこで、感染症内科に対診したところ、①頭頸部領域を感染源とする感染症であり、②左側胸鎖乳突筋にかけて著明な圧痛があったことから内頸静脈の血栓性静脈炎が疑われ、③胸部 CT 所見にて両側肺野の多発膿瘍形成が認められたことより、Lemierre 症候群と診断された。

間隙、頸動脈鞘に感染が波及し血栓性静脈炎を引き起こす全身感染症で、1936 年に Lemierre により 20 例が報告された¹⁾。起炎菌としては *Fusobacterium necrophorum* による発症の報告が多いが、*Bacteroides melaninogenicus* など多彩な菌による発症の報告がみられる^{2, 3)}。自験例は腸内細菌 *Hafnia alvei* による発症が疑われた。

Lemierre 症候群は、頭頸部の感染巣に起因した内頸静脈の細菌性血栓が血行性に肺や各種臓器に膿瘍を形成することにより発症すると考えられている。頭頸部感染巣からの感染経路としては頸部筋膜を介して直接進展する経路と扁桃静脈あるいは内頸リンパ系を介して炎症が波及する経路が考えられており、自験例では顎下部に形成された膿瘍が放射線照射により疎になった頸部筋膜を介して内頸静脈に波及したと考えられた。画像診断で内頸静脈に明らかな血栓形成は認められなかったが、内頸静脈周囲の腫脹・圧痛という臨床所見があったことから、内頸静脈に血栓性静脈炎が生じて敗血症性肺血栓からの多発性の膿瘍が生じたと考えられた。

初発症状としては、扁桃炎・咽頭炎が 33 %、炎症による頸部腫脹が 23 %、頸部疼痛が 20 % と頭頸部の感染症状が多いと報告されている^{4, 5)} が、感染症状の消退後に膿瘍波及による胸部痛などの遠隔臓器症状を訴えた報告もあり⁶⁾、頭頸部感染症状の消炎後も全身状態に対する注意が必要である。

自験例は顎下部の腫脹・圧痛を主訴に来院し、血液検査や臨床所見から顎下部膿瘍が疑われた。顎下部膿瘍の原因ははっきりしないが、左側顎下部に違和感を自覚する直前に、左側口底粘膜に魚の骨が刺さった記憶があることに加えて、高齢、原疾患のため免疫能の低下や、以前の放射線治療のため局所の状態が良好でなかったことも相俟って、粘膜損傷部からの感染が顎下部に波及したと考えられた。感染症が疑われたが、悪性リンパ腫の既往があったため、悪性リンパ腫の再発や頸部リンパ節転移との鑑別を必要とした。そのため全身検索目的に PET を撮影したところ、肺に多発性の集積を認め、胸部 CT においても Lemierre 症候群に特徴的な画像所見である多発性結節陰影が確認され⁷⁾、悪性リンパ腫の再発よりも Lemierre 症候群が強く疑われた。とくに本症例では無症状であった肺の膿瘍を検出する上で、PET による診断が有用であった。PET の炎症反応への集積は悪性腫瘍の遠隔転移診断に際しては問題となるが、これを積極的に炎症病巣の診断に用いることが検討されている⁸⁾。Lemierre 症候群においても、PET のみで確定診断が得られることは少ないが、病巣部位が明らかになることで CT・MRI による精査や、生検・穿刺が可能となり、診断や治療方針の決定に大いに役立つものと思われる。

Lemierre 症候群の遠隔炎症巣としては、肺の頻度が 79 ~ 100 % と最も高く、他に四肢および体幹の関節、肝臓・脾臓などの腹腔内臓器が報告されている⁵⁾。本症例では PET において肺以外の部位への遠隔炎症巣は認められなかった。

治療における抗菌薬の選択は嫌気性菌に対してペニシリ

ン系・クリンダマイシン系・メトロニダゾールを用い、治療期間は 4 週間以上が推奨されている^{4, 7)}。自験例は初診時より *Hafnia alvei* に感受性のある SBT/ABPC 3g/日を投与していたが、Lemierre 症候群の診断確定後は 9g/日に増量した。薬疹発現後は CPFX 0.6g と CLDM 1.8g/日に変更し、計 21 日間投与することで治癒がえられた。肺や腹腔内臓器の感染巣に対しては長期の抗菌薬投与を行う必要があるが、頭頸部領域の膿瘍に対しては、早期に外科的切開・排膿を行うことが治療上重要と考えられる。

Lemierre 症候群は抗菌薬の発達と共に forgotten diseaseと言われるようになったが、近年は抗菌薬の不適性使用による耐性菌出現の報告が増えており、今後再び大きな問題となる可能性もある⁶⁾。発症に気づかずに診断が遅れれば、致死性となる場合もあるため^{3, 9)}、十分な知識をもって治療に臨むことが重要であると思われる。

結 語

顎下部膿瘍から Lemierre 症候群に至ったと考えられた 1 例を経験したので、その概要について若干の文献的考察および検討を加えて報告した。

本論文の要旨は第 21 回日本口腔科学会近畿地方部会（2009 年 11 月、橿原市）において発表した。

引 用 文 献

- 1) Lemierre, A.: On certain septicemias due to anaerobic organisms. The Lancet 227: 701-703 1936.
- 2) Peter, D.K., Sheetal, A., et al.: Lemierre's syndrome: A systematic review. The Laryngoscope 119: 1552-1559 2009.
- 3) Denise, R.S., Marcelo, B.G., et al.: Septic pulmonary embolism secondary to jugular thrombophlebitis: a case of Lemierre's syndrome. J Bras Pneumol. 34: 1079-1083 2008.
- 4) Pablo, R., Lorena, G., et al.: Lemierre's syndrome: A serious complication of an odontogenic infection. Med Oral Pathol Oral Cir Buccal 1: 398-401 2009.
- 5) Chirinos, J.A., Lichtstein, D.M., et al.: The evolution of lemierre syndrome: Report of 2 cases and review of the literature. Medicine 81: 458-465 2002.
- 6) 川島篤志：Lemierre 症候群。呼吸 27: 898-901 2008.
- 7) Peter, B. and Thomas, G.: Lemierre's syndrome: What are the roles for anticoagulation and long-term antibiotic therapy?. Ann Otol Rhinol Laryngol 117: 679-683 2008.
- 8) 窪田和雄，行廣雅士，他：PET の展望 炎症性疾患への応用。臨床放射線 52: 432-439 2007.
- 9) Riordan, T. and Wilson, M.: Lemierre's syndrome: more than a historical curiosa. Postgrad Med J 80: 328-334 2004.