症例報告：

多発性結節陰影を呈した肺エキノкокクス症の一例

国枝武文*, 佐藤英文*, 三島信彦**

多包虫症 (AHD: alveolar hydatid disease) は北海道では1937年, 礼文島出身者における報告に始まり, 以後同島中心に流行及び鎮静化, 1960年代中期より道東での発症及び症例数の増加, 更に以後道南及びその他地域での発症が相次ぎ, また報告症例数も1980年代中期より増加傾向を認め, 深刻な疫学的問題となっている。一方本州においては東北地方を除いて発症報告は極めて稀で, それ故その診断には臨床, 病理面とも注意を要する。現在迄愛知県下での発症報告は見当たらないが, 今回X線像上胸水で発症し, 両肺野の多発性結節陰影へと進展した肺多包虫症の一例を経験した。潜伏期は45年と極めて長く, 当地域での稀有さ故診断に苦慮した。

①肺多包虫症 ②胸水 ③アルベンダゾール ④多発性結節性陰影

緒言

多包虫症はキタキツネを代表とする終宿主からの虫卵を経口摂取する事により感染する。一次病巣は殆どが肝であり定着後10～10数年の無症状潜伏期を経て肝障害, 肝腫瘤として発症する事が多い。肺病変の合併は20%前後とされるが殆どが肝よりの2次病変 (転移) と思われる。今回, 明らかな肝障害は認めず胸水で発症し, 両肺野の多発性結節陰影へと進行した肺包虫症の一例を経験したので報告する。

症例

65歳 男性 無職 愛知県海部郡在住

主訴: 右季肋部痛, 咳嗽

既往歴, 家族歴: 特記事項無し, B.I 400

現病歴: 平成元年3月29日上記主訴にて来院, 胸部X線像にて右胸水を認め (図1), 初回入院。胸水, 末梢血にて好酸球の増多を認めたが確診所見は得られず結核性胸膜炎の診断にて抗結核

薬による治療を開始した。

胸水排除後施行した胸部造影CT (図2) にて肝直上右肺中葉部に一致して多包性を示唆する塊状影, 及び肝門部に散在性の石灰化を認めたが, 気管支造影では陰影と気管支との関連は無く胸膜炎の伴う胸膜の随伴性変化と考えた。

治療開始後症状は消失し小康の為退院となり, 外来通院にて治療継続, 経過観察となった。

定期的X線検査にて胸水の再貯留は認めず同年12月にて治療を終了し, 更に6か月毎に経過観察を行ったが明らかな変化は認めなかった。

平成5年8月, めまい, 頭重, 嘔気が数日続き来院し, 頭部CT検査では異常を認めなかったが胸部X線像において両肺野に多発性結節性陰影の出現を認め第2回目の入院となった (図3)。

入院時現症: 身長159 cm, 体重59 kg, 脈拍72/m 整, 血圧136/84, 眼結膜に黄疸, 貧血は認めず, 甲状腺, 表在リンパ節共触知しなかった。胸部聴診では呼吸音に左右差及びラ音は聴取せず, 心音は清であった。腹部触診においては腹壁は軟で圧痛はなく, 肝脾は触知しなかった。神経学的異常も無く, チアノーゼ, 浮腫も

* 厚生連海南病院 呼吸器内科

** 同 臨床総合内科

(受付: 1996年4月10日)

図1. 初回入院時胸部X線像

図3. 第二回入院時胸部X線像

図2. 造影胸腹部CT像

認めなかった。

入院時検査所見：血液一般検査においては白血球は7,100と正常であったが好酸球は31.5%と著増を認めた。生化学検査では膠質反応が高値であったが明らかな肝機能障害は認めなかった。血清学検査ではCRP, RAは陰性、免疫グロブリン分画にてIgGは3,682 mg/dlと増加、IgEは56,000 iu/mlと著増を認めた。各腫瘍マーカーは陰性で、尿、便検査、及び喀痰検査にも異常を認めなかった。

X線像上転移性肺腫瘍が疑われた為全身検査を行ったが、原発巣を示唆する所見は得られず

表1. 入院時検査所見 (H 5. 8. 10)

血液一般検査：	RBC 468 Hb 15.2 Ht 43.7 Plt 16.4 Ret 2%
	CBC 7100 (Neut 43.3 Baso 1.0 Eos 31.5 Lym 21.1 Mon 3.1) (%)
生化学検査：	TP 8.7 Alb 3.7 TTT 18.6 ZTT 17.8 GOT 22 GPT 23 ALP 197
	LDH 150 CHE 0.86 γ GTP 33 T-Bil 0.7 CPK 93 AMY 85 T-CHO 185
	TG 106 BUN 14.0 UA 5.3 Crea 0.9 Na 141 K 3.9 Cl 108 Ca 4.4
血清学検査：	CRP (0.5) RA <16.0 ASLO 134 IgG 3682 IgA 326 IgM 399
	IgE 56000 iu TPHA (-) HBS-Ag (-) HBS-Ab (-) HCV (-) BSR 43 (1h)
	FBS 89
腫瘍マーカー：	CEA 1.0 AFP 2.1 CA19-9 14 PSA 0.5
尿検査：	異常なし 便検査：潜血 (-) 虫卵 (-)
喀痰検査：	一般, TB菌 (-) 細胞診 class I, 好中球 (+)

開胸肺生検を施行した。

病理診断は肺寄生虫症であったが、寄生虫の特定は出来ず対症療法にて再度通院、経過観察となった。

平成6年5月頃より胸部X線像にて結節陰影の増強傾向を認めた為、PIE症候群のentityと考えステロイドの漸減投与を試みたが効果を認めず、同年末より咳、息切れ、発熱が持続し、平成7年1月25日三回目の入院となった。

入院時の胸部X線像で陰影は更に増強しており(図4)、動脈血ガス分析ではPH 7.48, PO₂ 56.6 tor, PCO₂ 25.4 torと呼吸不全を呈していた。

入院後、肺野の陰影に対して気管支鏡検査

図4. 最終入院時胸部X線像

(TBLB)を施行したが確定所見は得られず、あらためて寄生虫症について職歴、居住歴、ペット等について詳細な問診を行ったところ、終戦時兵役にて約1年間北海道千島列島のシムス島での居住歴を聴取した。この為多包虫症を疑い免疫血清検査を依頼し、開胸肺生検の組織を再検討した。

免疫血清検査においてスクリーニングのELISA法ではOD値0.75と疑陽性、確認法のWestern blotting法では(図5)のごとく強陽性を呈した。

また、肺生検組織は(図6)のごとく肉芽腫性変化の中にPASに濃染する膜様物(クチクラ層)に囲まれた嚢包が散在して認められ、典型的多包虫症の組織像を呈した。

以上より肺多包虫症と診断、外科的治療の適応は無く、アルベンダゾール400 mg/day(4週内服2週休薬の繰り返し)による治療を開始した。

血液検査上明らかな副作用は認めず、自覚症状も消失した為外来通院にて経過観察中である。(図7)はアルベンダゾール投与開始前、(図8)は投与3か月後の胸部CT所見であるが、肺野の結節は縮小、硬化傾向を示し臨床的に、著効と思われた。

図5. 免疫血清検査(Western blotting 法)

図6. 肺生検組織像(×400)

考 察

胸水にて発症し、多発性肺結節へと進展した肺多包虫症の一例を報告した。

発症より診断確定、治療開始に3回の入院を含め約6年を要したが、診断が困難であった要因を文献的考察をふまえ振り返ってみる。

疫学的統計において¹⁾本州における多包虫症の報告は東北地方を除いて尚極めて稀であり、京都以西、大阪以南の発症報告は無い。中部東海地区では長野で2例、三重で1例²⁾有るが、愛

図7. 治療前胸部 CT 像

図8. 治療3か月後胸部 CT 像

知、岐阜、静岡での報告は無く、当症例は愛知県における第1例と思われる。この為、臨床、病理面とも当疾患に遭遇する機会は殆ど無く、診断が遅れた最大の要因となったと思われる。

次に、感染後発症迄の潜伏期間が約45年と極めて長かった事も疾患の推定に困難をもたらした。多包虫症の潜伏期は他の寄生虫症と比較し10～10数年と長い事も特徴の一つとされるが、40年を超える報告は殆ど見当たらず、問診での居住環境、食歴、ペット等の聴取において時間的ズレがあった事も要因の一つと思われた。

さらには初発症状が胸水であった事も診断を困難にした。多包虫症において肺病変の合併は数～20数%とされるが、殆どの場合が肝原発の2次病変であり、初発症状も腹痛、肝腫大、肝機能障害等、原発巣の進展に伴うものが多い。当症例も初回入院時のCT検査において肝門部の石灰化及び右横隔膜面に塊状影を認めたが、肝機能障害は無く右胸膜炎の診断より、さらなる精査に至らなかった。

確定診断については、生前における手術、または生検しかない。肝病巣には腹腔鏡下針生検の適応となるが^{3,4)}肺病巣に対しては気管支鏡下肺生検(TBLB)により診断を得た報告は見当たらず、採取組織の量的限界もあり開胸肺生検が必要と思われる。

補助診断法として重要な免疫血清検査は各種有るが、流行地北海道の北海道衛研ではスクリーニングにELISA法、確認法としてWestern blotting法が良いとしている⁵⁾。

画像診断として肺病巣は肺腫瘍、肺結核との鑑別が問題になる事が多いが、当症例のごとく胸水をきたす例もあり画像的特異所見は乏しいと思われ、やはり一次病巣である肝病変の存在、及びその画像学的特徴(石灰化、多包性嚢包等)の検討が重要と思われる⁶⁾。

治療に関しては根治を期待出来るのは手術による肝一次病巣の完全摘除しか無いが、二次病巣を伴う例においてはベンスイミダゾール系薬剤による化学療法が行われる。本症例では近年治験が進行中で⁷⁾副作用が少なく腸管吸収が良好とされるアルベンダゾール(エスカゾール[®])により治療を継続しているが、副作用は認めず画像学的にも効果を認め、良好な経過を得ている。

謝 辞

稿を終えるにあたり、免疫血清検査において御協力、御助言いただいた北海道衛生研究所の古屋宏二先生に深謝いたします。

文 献

- 1) 高橋昭博, 山口富雄, 稲葉孝志, 他. 本州における多包虫症の文献的考察. 寄生虫誌 1986; 35(2):

- 95-107.
- 2) 西岡安弘, 北田 修, 谷向 健, 他. 関西地方で経験した多房性肺包虫症の1例. 日胸疾会誌 1992; 30: 898-902.
 - 3) 並木正義, エキノコックス症の臨床—最近の問題点を含めて—. Clin Parasitol 1990; 1(1): 9-20.
 - 4) 関谷千尋, 幸田弘信, 多包性肝エキノコックス症. 消化器内視鏡 1993; 5 12: 1653-1659.
 - 5) 古屋宏二, 佐藤秀男, 熊谷 満. 包虫症の免疫学的診断のための Western blotting 法の応用. 医学の歩み 1987; 141(1): 41-42.
 - 6) 石川裕司, 高橋 篤, 矢崎康幸, 他. 多包性肝エキノコックス症の腹腔鏡所見—他の画像診断や臨床所見を含めて—. 腹腔鏡(9): 53-59. 東京日本医学館, 1989.
 - 7) 佐藤直樹, 内野純一, 青木 茂, 他. 多包性肝エキノコックス症に対する benzimidazole 系薬剤の効果. 日消誌 1994; 91(7): 1197-1204.

A Case Report of Alveolar Echinococcosis of the Lung

Takehumi KUNIEDA*, Hidehumi SATO* and Nobuhiko MISHIMA

Alveolar echinococcosis results from infection by *E. multilocularis* and has spread throughout Japan's northern island of Hokkaido during the last four decades. However, this malignant parasitic disease is very rare on the main island of Honshu. Here we report a case of alveolar echinococcosis of the lung, probably the first case found in Aichi Prefecture. The patient, a 65-year-old male, was admitted on March 1989 with marked Rt. hypochondalgia. Though Rt. pleural fluid was observed on chest radiograms, he showed moderate improvement after the chemotherapy for tuberculosis. On March 1993, he was admitted again as x-rays revealed marked multiple nodular shadows on the lungs. Open lung biopsy was followed. The result of pathological diagnosis was parasitosis of the lung, but no parasite was identified. Although symptomatic therapy was continued for one year and six months, his symptom became worse and he was readmitted. Further history taking revealed the fact that he had resided on one of Chi-shima islands off Hokkaido for one year. A positive result of ELISA was confirmed. Long-term Albendazole therapy can result in a parasitological cure with reduction of the lesion in the lung.

* Department of Internal Medicine, Koseiren Kainan Hospital