類白血病反応を呈した Subsepsis allergica の一例

日本医科大学附属病院小児科 (主仕 木田文夫教授)

講 師 手 代 木 正
Tadashi Teshirogi

助 手 畑 実
Minoru Hata

研究生 芳 野 隆
Takashi Yoshino

緒 言

Subsepsis allergica は 1943 年 Wissler により、初めて記載されたもので、長期にわたる発熱、発疹をもち、慢性に経過する敗血症に似た疾患とされている。前に私達は類白血病反応を呈したりウマチ熱の二例につき報告したが、今回 Subsepsis allergica と思われる症例の経過中、最高 9 万にもおよぶ、白血球増多をみたので、ここに報告する。

症 例

8 才女兒

家族歴

父母共に健在、一人子で家系に遺伝性疾患は無く、特記すべきことはない。

既往歴

生来健康で特記すべきことはない。

現症歴

昭和 37 年 5 月 28 日、10 日前より 38°C 前後の発熱、左手、膝関節部の腫脹、紅斑、疼痛を訴え来院し、入院した。

入院時所見

両手足関節部の腫脹、結節性紅斑、疼痛を認め、胸部で心音清純、腹部に変化はなく、神経系統正常、心電図、レントゲンに異常を認めず。

血液所見

赤血球数 410 × 10⁴

血色素量 84%

白血球数 16,000

出血時間 1 分 30 秒

凝固時間

開始 3 分 30 秒

完結 11 分 30 秒

血 沈 1 時間値 96 mm

CRP +3

ASL-O 333 単位

血液培養 菌陰性

尿、糞便検査 正常

尿 17 KS 値 正常

マントー反応 陰性

入院中の熱型および治療、白血球数を第 1 表に示した。

各種抗生物質ならびに、ステロイドなどで、治療を

第 1 図

	W	St	Seg	Met	My	PrMy	Mo	Eo	Ba	Lym	R	Hb	Pl.C	BSG	CRP
月日															
V 28	16,000	1	80.5	0	0	0	2.5	0	0	16	410	80	25	96	+6
VI 4	38,000	2	80	1	0	0	2	0	0	14	413	76		100	+5
11	42,000	2.5	67.5	0.5	0	0	1	0.5	0	16				96	+6
VII 1	12,800	12	65	1	0	0	3	0	0	19	380	65	20	50	+2
VIII 10	18,000	5.5	78.5	0	0	0	2	2	0	12				48	+1
IX 7	15,800	5.5	55.5	0	0	0	2	1	0	36				60	+3
28	17,900	3	60	0	0	0	3	1.5	0	32.5				35	—
X 5	12,500	4	50	0	0	0	5	0	1	40	460	90		15	—
15	11,600	4	45.5	0	0	0	3.5	1	0	46				10	+1
XI 2	9,200	4	38	0	0	0	3	1	0	54	457	75	27	35	+1
17	10,000	4	40	0	0	0	3	4	0	49.5				30	+1

第 2 図

したが解熱せず、最高 40.4°C の発熱をきたし、関節部の腫脹、疼痛が続き、入院第 33 病日目より解熱し、以後平熱が続いた。第 2 表のごとく、入院第 12 病日目に、白血球数、42,000 を数えたが、Myelocytin Promyelocytin などとはみられず、その後次第に減少し、その間血液培養は静脈血、動脈血共に菌陰性、胸部、腹部、レントゲン、心電図に変化はみられず、血液生化学的変動の著変はみられず、解熱後次第に関節部の腫脹、紅班、疼痛も軽減しだし、CRP 陰性、白血球数、血沈正常となり、自覚症状も無く、昭和 37 年 11 月 22 日退院した。退院後約 1 ケ月メドロール 2 mg を 1 日量として投薬を続け、その後は、ステロイドを除き、アスピリン、およびズルファミン剤を投与しながら通院させ観察していたが、昭和 38 年 11 月 7 日、2 日前より 38°C 前後の発熱、左手足関節部の腫脹、疼痛、紅班を認め再発と考え、再入院させた。

入院時所見

左手、両足関節部の腫脹、紅班、疼痛、咽頭炎を認

め、胸部で心音清純、聴打診に異常なく、第 3、第 4 表のごとく、心電図上、PRQT の延長、ST 偏位などはみられず、レントゲン写真上、心陰影の拡大もみられない。腹部で肝臓を季肋下で 1 横指触れ、軽度の圧痛があり、脾臓は触知しない。神経系統も正常で、病的反射を認めない。

血液所見

赤血球数 412×10^4

血色素量 80%

血小板 25×10^4

白血球数 21,800 (幼若細胞はみられない)

CRP +3

血沈 1 時間値 82 mm

出血時間 2 分 30 秒

血液培養 菌陰性

血液理化学検査 正常

尿糞便検査 異常なし

咽頭培養 病原菌 (+)

入院中の治療、熱型、白血球数は第 5 表に示した。

入院後、ステロイド、抗生剤を投与するも、弛張熱は全く影響されず、一般状態は悪化し続け、入院第 7 病

第 3 図 心 電 図 (昭 38.11)

第 4 図

第 5 図

日目より関節部の疼痛、エリテマ腫脹のほか、顔面頸部に麻疹様発疹、頸部リンパ腺腫脹、結膜炎、口内炎があらわれ、食欲不振で、肝臓2横指触れ、圧痛あり、約3週間その状態が続いた。その間血液培養、静脈、動脈血共に菌陰性、血沈1時間値 50~150 mm, CRP +3~+8 で肝機能検査は正常だった。

第6表のごとく、白血球数が増加し、最高は9万にもおよんだが、好中球が95%で、Myelocytopen Promyelocyt などの、幼若細胞はほとんどみられなかった。赤血球数 270×10^4 血色素量50%と貧血もみられ入院第10病日をピークに次第に白血球数も減少し、赤血球数血色素量も増加し、入院第42病日目よりCRPも陰性となり、関節部の疼痛減少し、リンパ腺腫脹、関節部腫脹も治ゆし、体温も平常にもどり、一般状態も良くなつてきた。入院第58病日目頃より歩行も自由にできるようになり、昭和38年2月12日に退院した。その後、時折関節痛を訴えるも、ステロイド、タンデリール、ブタゾリン、EA錠などの投与により数日で疼痛もなくなり、通院させ観察している。

月日	W	St	Seg	Met	My	PrMy	Mo	Eo	Ba	Lym	R	Hb	Pl.C	BSG	CRP
XI 9	21,800	4	89	0.5	0	0	0.5	0	0	6	412	80	25	82	+3
14	36,400	4	89	1	0	0	0	0	0	6				86	+5
16	58,800	3.2	90.8	2	0.6	0.6	0.8	0.4	0	3.2					
18	90,000	4	90	2	0.5	0.5	0	0	0	3	270	50		50	+8
21	72,200	4	90.5	1	0.5	0	0.5	0	0	3.5					
25	49,600	2	91	1	1	0	0	0	0	5	320	54	15	124	+6
XII 3	31,000	3	87	1	0	0	0	0	0	9				148	+5
25	25,800	4	86	0	0	0	0	0	0	10	308	60		90	—
I 6	20,000	4	74	0	0	0	1	0	0	21				13	—
20	14,200	4	56.5	0.5	0	0	4.5	1	0	33.5	526	75		11	—
II 12	9,000	7	51	0	0	0	1	1	0	40	500	85	20	10	—

第 6 図

年 月	血 沈 値		白血球	赤血球	血色素
	1 st	2 st			
39. 3	22	57	7,000	380×10^4	70%
4	15	32	6,300	390×10^4	75%
5	8	15	7,200	400×10^4	75%
6	10	22	6,200	425×10^4	70%
7	20	60	7,000	420×10^4	70%
9	24	35	8,200	435×10^4	80%
10	19	58	16,000	420×10^4	75%
12	13	49	8,000	410×10^4	75%
40. 1	11	31	8,300	425×10^4	77%
2	8	27	7,900	420×10^4	75%

第 7 図

その後の経過は次の通りである。

考 按

Subsepsis allergica の症状は、Fanconi によると数ヶ月におよぶ間欠熱、一過性に出現する発疹、および関節症状、核圧方移動をとまなう白血球増多、しかも好酸球消失がみられない。又心内膜炎はおこさず、リンパ腺腫脹が認められ、脾腫のあることがある。

又流血中の菌培養は陰性、幼児期に好発し、抗生剤は

無効で、ステロイドホルモンが有効などである。

以上のように Subsepsis allergica は症状により命名された一症候群名であるが、Fanconi は、菌血症疾患で、リウマチ熱と Still-Felty Syndrom の中間に介在していると説明している。本症例では、40日間余りもわたる弛張熱、紅班、麻疹様

発疹の一過性の出現、白血球増多、心内膜炎はみられず、関節腫脹、血液中原菌陰性、リンパ腺腫脹、抗生剤の無効など、Subsepsis allergica に一致する点が多く、ステロイドが必ずしも効果があつたとも思われないが、リウマチ熱より、むしろ Subsepsis allergica と考えた。白血球増多については、ステロイドホルモン使用による核左方転移をともしなわぬ、最高2万におよぶ白血球増多症の報告もあるが Subsepsis allergica では白血球増多が一症候とされている。本邦での報告例では、最高3万4千、Wissler の発表では最高5万と報告されている。今回の症例では最高9万におよんだ。しかしそのほとんどが多核好中球で、その割には幼若好中球の出現はみられず、骨髓芽球はなく前骨髓球、骨髓球を僅かにみた。この時期は一般状態が重篤であり、幼若細胞の出現が少なかったため、骨髓穿刺はおこなわなかつたが、北村の類白血病分類によれば、末梢血に骨髓芽球が出現せず、前骨髓球又は骨髓球が出現し、あるいは、これらの幼若細胞が出現しなくても、5万以上の白血球増多を示す、いわゆる第1度の類白血病反応と考えた。又松山の類白血病性反応の臨床的観察の分類によると、骨髓性類慢性白血病性反応に該当し、予後は必ずしも悪くはないと、

いわれている。

結 論

以上類白血病反応を呈した、Subsepsis allergica と診断した1例を報告する。本報告の要旨は、昭和39年2月29日、第14回、臨床血液学会で発表した。

文 献

- 1) 田口信行他：臨床血液，1，664（昭35）
- 2) Hill, J.M. & Duncan, C.N. : Amer. J. Med. Sci., 201, 847 (1941)
- 3) 中尾喜久：日本臨床，16，1535（昭33）
- 4) 平木 潔：日本血液学雑誌，22，（補冊）：710（昭34）
- 5) 三宅 仁：日本血液学雑誌，14（補冊）：310（昭26）
- 6) 北村四郎：日本血液学雑誌，22（補冊）：740（昭34）
- 7) 小宮悦造：臨床血液学，南山堂
- 8) Winstrobe, M.M. : Clinical Hematology, Fifth Edition, Lea & Febiger (1961)
- 9) Harris, T.N. et al. : Pediat, 25, 80 (1960)
- 10) 北村四郎，他：日本血液学会雑誌，21，1008（昭33）
- 11) 手代木正，他：臨床内科小児科，17，147（昭37）
- 12) 手代木正，他：臨床内科小児科，17，6（別冊）（昭37）
- 13) Halbert, S.P. et al. : J. Exp. Med., 112, 759 (1961)
- 14) 植田穰，他：小児科臨床，14，459（昭36）
- 15) Brenner, W.V. : New York Acad. Sci., 59, 907 (1955)
- 16) 松山秀介：小児科診療，28，2（昭40）

（受付：1965年4月10日）