抗リン脂質抗体の一過性の上昇を認めた重症Lemierre症候群の1例

西尾 真也 中野 悠平 佐藤 洋志 増山 敦
鶴田 信慈 原岡ひとみ

要 旨

症例は25歳、男性。発熱と咽頭痛を主訴に近医を受診し、急性扁桃膿瘍の診断で抗生物質を処方されるも改善せず当院を受診。敗血症性ショックを認め、集中治療管理となった。血液培養で*Fusobacterium necrophorum*を検出し、敗血症性肺塞栓症と右内頸静脈血栓を認めLemierre症候群と診断した。長期の抗生剤投与にて軽快したが、経過中に一過性の抗カルジオリピン抗体と抗CLβ2GPI抗体の上昇を認めた。

〔日内会誌 102: 966~968, 2013〕

Key words Lemierre's syndrome, *Fusobacterium necrophorum*, 抗リン脂質抗体

症 例

患者：25歳、男性。主訴：発熱、咽頭痛。既往歴：特記事項なし。家族歴：特記事項なし。生活歴：喫煙歴なし、アルコールは機会飲酒。現病歴：入院10日前より、40度台の発熱と咽頭痛を認めたため近医を受診した。急性扁桃膿瘍と診断され、内服薬を処方されるも軽快せず、悪寒戦慄と意識障害を認めたため当院に搬送された。入院時現症：JCSI-3、体温40.1℃、血圧108/80 mmHg、脈拍175回/分・整、SpO₂ 99% (room air)。項部硬直なし。咽頭発赤を認め、右頸部に腫脹と圧痛を認めた。その他一般身体所見や神経学的所見に特記事項なし。入院時検査所見：白血球数9,400/μl(桿状核球18.5%、分葉

核球55.0%)、CRP 40.5 mg/dlと炎症反応高値を認めた。T-Bil 7.3 mg/dl、D-Bil 5.7 mg/dl、ALP 1,082 U/l、γGTP 54 U/lと肝胆道系酵素の上昇を認め、Cr 1.16 mg/dl、BUN 40.5 mg/dlと腎障害を認めた。血小板数1.4万/μl、PT比1.12、FDP 20.6 μg/ml、ATIII 52%とDICを認めた。胸部単純写真では両肺野に多発する浸潤影、胸部CTでは両肺野に空洞を伴う多発性の小斑状結節影を認めた(図1a, b)。

臨床経過

入院後、血圧低下と呼吸不全を認め、昇圧薬投与と人工呼吸器管理を開始した。敗血症性ショックと敗血症性肺塞栓症、播種性血管内凝固症候群(DIC)の診断でタゾバクタム/ピペラ

〔第587回関東地方会(2012/05/12)推薦〕〔受稿2012/11/09、採用2012/12/11〕

板橋中央総合病院内科

Case Report; A case of severe Lemierre's syndrome with transient elevation of antiphospholipid antibody.

Shinya Nishio, Yuhei Nakano, Hiroshi Sato, Atsushi Masuyama, Shinji Tsuruta and Hitomi Haraoka : Department of Internal Medicine, Itabashi Chuo Medical Center, Japan.

図 1. 胸部画像検査および頸部造影CT

シリン (TAZ/PIPC) 18 g/日とトロンボモジュリン 130 U/kg/日, アンチトロンビンIII 1,500 U/日を開始した. 初期治療が奏功し, 早期に発熱と炎症反応は改善し, ショックとDICを離脱, 抜管に成功した. その後, 血液培養から*Fusobacterium necrophorum*が検出され, 頸部超音波と頸部CT (図 1c) では右内頸静脈血栓を認めたため, 本症例は扁桃炎を契機に発症したLemierre症候群 (LS) と診断した. 第13病日よりABPC/SBT 6 g/日とCLDM 2,400 mg/日を開始した. その後, 血液培養の陰性化と炎症反応の正常化を認め, 第28病日よりクラブラン酸/アモキシシリン (CVA/AMPC) 1,000 mg/日に変更し, 第33病日に退院した. なお, 第10病日の血液検査で抗カルジオリピンIgG抗体 57.0 U/ml, 抗CL β 2 GPI抗体 14.1 U/mlと上昇を認めた. 6週間後のフォローでは, 抗カルジオリピンIgG抗体 14.0 U/

ml, 抗CL β 2 GPI抗体 1.2 U/ml以下と大幅に低下を認めたことから, 一過性の上昇と考えた.

考 察

LSは頭頸部, 上気道の感染を契機として内頸静脈の血栓性静脈炎と敗血症性肺塞栓, 敗血症に至る急速進行性の疾患である. 発症の平均年齢は20歳で, 免疫が保たれている若年者に発症するが¹⁾, 死亡率は4~8%と報告されており決して低くない²⁾. LSでは, 抗リン脂質抗体もしくは抗カルジオリピンIgM抗体およびIgG抗体が陽性になる例が報告されている^{3, 4)}. これは, *Fusobacterium*の菌体の一部のアミノ酸配列が β 2 GPIのリン脂質結合を担うアミノ酸配列と類似しているため, β 2 GPIと同様の形式でリン脂質に結合し, 抗リン脂質抗体の産生が誘導されると考え

図2. 臨床経過

られる⁵⁾。本症例では非特異的な抗カルジオリピン抗体のみならず、抗リン脂質抗体症候群に特異的な抗CL β 2GPI抗体の上昇も認めた上、感染が鎮静化した後のフォローでは低下を認めていたことから、LSに伴って一過性に上昇したものと考えられる。LSでは化膿性血栓性静脈炎が36%で発生することが報告されているが⁶⁾、抗リン脂質抗体の血栓に対する役割は明確になっていない³⁾。LSにおいて抗CL β 2GPI抗体の上昇を認めた症例は我々の知る限りでは本症例が初めてである上、LSに伴う一過性の上昇であることを確認し得た非常に貴重な症例であると考え報告した。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関連して特に申告なし

文 献

- 1) Jacquelyn D, et al: Sore throat progressing to embolic sepsis: a case of Lemierre's syndrome. *Can Respir J* 17: e20-22, 2010.
- 2) Friberg N, et al: Factor H binding as a complement evasion mechanism for an anaerobic pathogen, *Fusobacterium necrophorum*. *J Immuno* 181: 8624-8632, 2008.
- 3) Jankowich M, et al: A 21-year-old man with fever and sore throat rapidly progressive to hemoptysis and respiratory failure. *Chest* 132: 1706-1709, 2007.
- 4) Salyers WJ, et al: No simple sore throat. *Am J Med* 120: 860-862, 2007.
- 5) Gharavi EE, et al: Induction of antiphospholipid antibodies by immunization with viral and bacterial peptides. *Lupus* 8: 449-455, 1999.
- 6) Moreno S, et al: Lemierre's disease: postanginal bacteremia and pulmonary involvement caused by *Fusobacterium necrophorum*. *Rev Infect Dis* 11: 319-324, 1989.