Cerebral sparganosis の 1 例

中島 英雄・三井 恒太・鈴木 守*・武井 一利*・石田 陽一**・加茂 甫***

Cerebral Sparganosis

Case Report

Hideo NAKAJIMA, Tsuneta MITSUI, Mamoru SUZUKI*, Katsutoshi TAKEI*,
Yohichi ISHIDA** and Hajime KAMO***

Department of Neurosurgery, Tatebayashi Health and Welfare Hospital, Tatebayashi, Gunma;
Departments of *Parasitology and **Pathology, Gunma University, Maebashi; ***Department of
Medical Zoology, Tottori University, Yonago, Tottori

Abstract

A case of cerebral sparganosis is reported. A 40-year-old male with left hemihypesthesia of 3 years duration developed memory disturbance during the last 6 months. In March 1981, the patient experienced a generalized convulsive seizure and was admitted to hospital. Computerized tomography scan demonstrated an abnormal high-density area with minimal contrast enhancement in the right temporal lobe, suggesting a benign glioma. A temporoparietal craniotomy was performed, and a living white tapeworm of approximately 10 cm in length was found. The parasite thus removed from the brain as a *Sparganum* of *Diphyllobothrium erinacei*. Counter-current immunoelectrophoresis of the patient's serum supported the diagnosis. The granulomatous lesion caused by the parasite manifested caseous necrosis with Langhans giant cells and with small scattered calcified bodies and infiltrated cells. It was presumed that the cerebral involvement was related to the patient's habit of eating raw the meat of a local carp, *Cryprinus caprio*.

Case reports of cerebral sparganosis are rare. Only 3 cases have been recorded in the literature. In two of them, a dead worm was detected at autopsy, while in the other and in the present case, a living worm was demonstrated at surgery.

Key words: sparganosis, intracranial parasite, granuloma, convulsion, computerized tomography

I はじめに

人体の脳に寄生する寄生虫で本邦における代表的なものは肺吸虫 (*paragonimus westermani*) と日本住血吸虫 (*Schistosomiasis japonica*) であるが、マンソン裂頭条虫の幼虫であるマンソン孤虫 (*Sparganum mansoni*) の中枢神経系への寄生はまれであり、文献上脳内寄生の報告は 3 例 (うち 2 例は剖検例)、また脊椎管内の寄生が 2 例報告されてい

るのみで、峯浦ら⁽⁴⁾の症例のごとく生きたまま脳より摘出された例はきわめてまれである。我々も最近、顔面を含む左半身の知覚麻痺、健忘および記憶力の低下などで発症し、左下肢より始まる Jackson 型痙攣発作が出現したため受診となり、諸検査の結果右側頭から右頭頂葉に及ぶ脳腫瘍の術前診断のもと開頭術を施行したところ肉芽腫の中から生きたマンソン孤虫が摘出された 1 例を経験したので、症例を報告するとともに若干の考察を行う。

館林厚生病院脳神経外科 *群馬大学寄生虫学 **同第一病理学 ***鳥取大学医動物学

Address reprint requests to: H. Nakajima, M.D., Department of Neurosurgery, Tatebayashi Health and Welfare Hospital, 262-1 Narushima, Tatebayashi, Gunma 374.

受稿 1983年7月19日 受理 1984年3月5日

Ⅱ 症 例

＜患者＞ 40才，男性，会社員

家族歴・既往歴：特記すべきことなし

生活歴：子供の頃より淡水魚の生食(特にコイの洗い)を好み、30才台からはほとんど毎夕食時に食べていた。

現病歴：1978年3月頃より左半身の重い感覚、左顔面の知覚低下に気付いていたが、日常生活、勤務などには支障をきたさないため特に精査も受けず放置していた。1980年秋頃より健忘が日立ち、しだいに強度となり、食事の内容を忘れたり自宅への帰路が分らなくなることもしばしば起こるようになった。1981年3月5日、左下肢から始まり全身に及ぶ間代性痙攣が出現し、3月7日館林厚生病院脳神経外科を受診した。

入院時現症：神経学的所見では、見当識はほぼ良好であるが記憶力の低下が日立ち、健忘、失算がみられた。運動系では明らかな筋力の低下はみられなかったが、左下肢の腱反射がやや亢進しており、左上肢に軽度の変換運動(反復)障害、測定障害がみられた。知覚系では顔面を含む左半身の知覚低下、錯(異常)感覚がみられたが、ほかに頭蓋内圧亢進を疑わせる所見は認められなかった。

補助的検査所見：頭蓋単純写では右側中頭蓋窩が左側と比較してやや脱灰傾向を認める以外、明らかな石灰化像、

骨の菲薄化像などはみられなかった。右側脳血管写は前後像では明らかな異常所見を認めなかったが、側面像で中大脳動脈群がやや上方へ弧を描いて挙上されているのがみられた。また、 $^{99m}\text{TcO}_4^-$ による脳 scintigram では明らかな hot area は得られなかった。脳波では右側全体に徐波が重畳または混入するのみで、明らかな発作波は認められなかった。CT scan(Fig. 1)では、plain CT ですでに右側頭葉中央部の皮質から内側へ向かう高吸収域とその周囲にほぼ右側頭葉全体にも及ぶ大きな低吸収域がみられ、造影剤注入後この高吸収域はわずかに増強された。その他、血液生化学的検査にては異常所見は認められなかった。

以上の臨床経過と諸検査から右側頭葉内の良性の神経腫と診断し、1981年3月3日、腫瘍摘出術を施行した。

手術所見：右前頭側頭頭頂開頭にて硬膜を剝離するとクモ膜はやや混濁肥厚しており、脳表もわずかに淡黄色に変色していた。脳表から触知すると側頭葉のほぼ全体に亘る皮質下にやや弾性硬の硬結が触知され、腫瘍の浸潤を思わせた。硬結のもっとも強いと思われた中側頭回後部より脳内に侵入すると、脳表より約1cmほど深部でさらに硬度の強い灰白色の腫瘍塊に達した。この中に分け入ると、吸

Fig. 1 Computerized tomography scan showing a small high-density area with minimal enhancement surrounded by an extensive low-density area in the right temporal lobe.

Fig. 2 Operative photograph of a *Sparganum mansoni* removed from the subcortical area of the brain. This worm was about 10 cm in length and showed undulate movement.

引管の先端に乳白色の長い紐状のものが吸引されてきた (Fig. 2). これはよく観察すると蠕動運動を行っており, なんらかの虫体と考えられたためこれを導出し, さらに腫瘍の一部分による術中診断で肉芽腫であったためこれを可及的に摘出し²⁾, 手術を終了した.

摘出された虫体 (Fig. 3) は全長 2.5 cm ほどで, club 様の形をした頭部は確認されたが尾部は切断されたものと思われる断端がみられた. この虫体は, 群馬大学寄生虫学教室ならびに鳥取大学医動物学教室にて Manson 孤虫と同定された. 虫体の頭部が取り出されたことにより, 本症例において再発はないものと判断された. また摘出された組織 (Fig. 4) は乾酪変性ないし乾酪壊死巣を主所見とし, 類上皮細胞, ラングハンス型巨細胞, リンパ球などがみられる結核病変に類似の変化が認められ, さらに多数の石灰小体が散在する parasitic granuloma と判定された. Fig. 5 に示すごとく, 術後ではあるが患者の血清を群馬大学寄生虫学教室にてカウンター免疫電気泳動法により鑑定したところ, Manson 孤虫であることが免疫学的に確認され, さらに術後約 6 カ月経過した時点でも術直後と同様の沈降線が得られたことから, 虫体の一部断端がなお病巣部に残って

Fig. 3 Plerocercoid surgically extracted from the patient's brain. Large arrow shows the head of the worm and small arrow indicates the cut end of the *Sparganum*. Scale indicates mm.

Fig. 4 Microphotograph of the involved brain tissue section showing the caseous lesion. A Langhans giant cell (LC) is seen in the center. Small calcified bodies (CB) are scattered throughout the lesion. HE stain, $\times 100$.

Fig. 5 Precipitations produced on gel plate by means of counter-current immunoelectrophoresis. Undiluted patient's sera were placed in the anode side wells, and in the cathode side wells, parasite antigen was applied. The parasite antigen was provided from *Diphyllbothrium erinacei* plerocercoid collected from wild snakes (5 g/ml protein and an equal amount of carbohydrate from the parasite). Serum taken from the patient just after the operation was tested in ①, and serum taken 6 months after the operation was studied in ②. Note that the demonstrated precipitations do not change, even 6 months after the removal of the worm.

いる可能性も考えられた。

III 考 察

マンソン裂頭条虫(*Diphyllbothrium erinacei*)^{7,25)} はイヌ、ネコ、キツネ、タヌキ、トラ、ヒョウ、ライオンなどの肉食動物を終末宿主とする擬葉目裂頭条虫科に属する寄生虫で、その生活環は Fig. 6 に示すごとくである。終末宿主のイヌ、ネコなどの糞便中に排出された虫卵が淡水中で繊毛幼虫(ciliated embryo)あるいは coracidium となり、第 1 中間宿主であるケンミジンコ(Cyclops)がこれを摂取し、その体内で前擬尾幼虫(proceroid larva)となる。この Cyclops がカエル、ヘビ、淡水魚、ブタ、イノシシ、ネズミなどの第 2 中間宿主に摂取されると、proceroid は消化管壁を通過し皮下組織あるいは筋肉内へ移行し、そこで擬充尾虫(plerocercoid)あるいは *Sparganum* に成長する。終末宿主は前記のごとき肉食動物であり、第 2 中間宿主の肉とともに plerocercoid を燕下し、それらが腸管内に住みついて成虫となる。人体感染はのちにも述べるが、この Cyclops を淡水とともに飲み込むか、plerocercoid の寄生している第 2 中間宿主の摂取(特に生食)によるものと推定されている。

Fig. 6 Diagram showing presumed infection routes causing human sparganosis by *Diphyllbothrium erinacei*. In the present case, however, the route was not defined. Def. host indicates definite host.

Sparganum(孤虫)とは1854年 Diesing により裂頭条虫科の幼虫で母虫が不明のものを総称して用いられた用語であり²²⁾、これが人体に寄生したものを sparganosis (孤虫症)²⁵⁾と呼ぶ。マンソン裂頭条虫の人体寄生は現在まですでに300例近く報告されているが成虫の寄生例はまれであり、本邦で3例^{8,9,18)}、中国で2例⁹⁾(この2例については虫体は確認されていない)報告されている以外はすべて plerocercoid の寄生による sparganosis である。

日本における症例がもっとも多いが、韓国^{4,13)}、中国、マレー、インド、ベトナム、フィリピン、オーストラリア、アフリカ、アメリカ^{20,23)} などからも報告されている。性差は1:1.6¹⁾から1:2⁷⁾で男性に多いが、これは男性のほうが感染の機会がより多いためと考えられる。また、年齢は20~50才台に集中している。

寄生部位は Tansurat²²⁾によれば大別して4つに分けられ、①皮下組織、②内臓、③眼部、④リンパ管で皮下組織が圧倒的に多く^{3,5,15,16)}、五十嵐によれば66%に当る。眼部も約10%と比較的多く報告されており、眼瞼結膜に寄生していることが多い^{11,17)}。しかしながら神経系への寄生はほとんどなく、我々の調べたかぎりでは呂頭にも述べたごとく、Lee ら¹³⁾と Park ら¹⁹⁾が報告している脊椎管内の2例があるがこれらはいずれも硬膜外寄生であり、真の意味での中枢神経系への寄生は黒岩¹²⁾、竹内²¹⁾、峯浦ら¹⁴⁾と本症例の4例のみである。さらに前2例は剖検で虫体が発見された例であり、手術時に生きた虫体が摘出されたのは峯浦ら¹⁴⁾について我々の症例が2例目となる。

脳寄生虫症の臨床症状は一般に急性期症状と慢性期症状に分けられ、前者は髄膜炎症状を、後者は嚢腫・膿瘍・肉芽腫形成により脳腫瘍症状を呈す。脳日本住血吸虫症では圧倒的に肉芽腫形成が多いが、広東住血線虫症では急性期の髄膜炎症状が主体であると言われている⁶⁾。マンソン孤虫症でも4例中3例が巣症状を呈し、特に痙攣発作が多いが、これは肉芽腫形成によるものと思われる。また肉芽腫の形成部位による巣症状としては運動麻痺、知覚麻痺、視野欠損などがみられるが、これは通常の脳腫瘍の症状と変りはない。なお血中好酸球の増加も一見所見であると言われているが、本例ではまったくこの傾向はなく、肉芽形成期においては特徴的な所見ではないと思われる。

治療は有効な化学療法剤がないと言われており、虫体を含め肉芽腫を摘出するのが最良の方法と思われる。

感染経路としては① procercoid が寄生している Cyclops を水とともに飲み込んだ場合、② *Sparganum* が寄生している肉類を生食した場合、③ 経皮および経粘膜感染などが考えられるが、本症例においては淡水魚、特にコイを生食していたため、おそらくたまたま消化管に生存していた幼虫が大血管あるいは神経・リンパ管などに沿って結合組織の間を通り、解剖学的裂孔から脳内に入ったもの⁶⁾と推定される。

第二次大戦後の生活様式の変化と医・化学の急速な進歩により、寄生虫症、ことに広義の脳腫瘍中に占める寄生虫症の割合は1958年の桂らによる全国統計¹⁰⁾ 1.6%より近年では激減したと言われて久しいが、最近寄生虫学者は症例報告の増加傾向を指摘している。その一因として、輸送手段の発達により肉類の生食が容易になったこと、さらに食物が潤沢となって食習慣にも変化がみられることなどが起因して感染の機会が増加したこと²⁴⁾、また一方でCT scanなどの検査手段が普及し病巣の発見が早期かつ容易に行われるようになったことなどが挙げられよう。したがって今後もこのような症例がまったく消滅するとは考えられず、やはり念頭に置いておかなければならない疾患の一つであろう。

IV 結 語

脳マンソン孤虫症の1例を経験したので報告した。脳マンソン孤虫症は文献上3例の報告がみられるが、2例は剖検時に診断されたものであり、手術により生きたマンソン孤虫が摘出されたのは本例が2例目であった。

本論文の要旨は、第5回日本脳神経外科学会関東地方会(1982年2月、東京)において発表した。

文 献

- 1) 天野純治, 影井 昇: 外科的寄生虫症, 特にマンソン孤虫症(*Sparganosis mansonii*)について. 日臨外医学会誌39: 122-132, 1978
- 2) 青木秀夫: 脳寄生虫の手術 一脳肺吸虫症を中心として一. 脳神経外科 5: 15-20, 1977
- 3) 荒木恒治, 中里秀男, 今岡昭夫, 福永 晶, 大沢 直, 松本信義, 安原 稔: マンソン孤虫症の2症例. 寄生虫誌 25: 343-348, 1976
- 4) Cho SY, Bae J, Seo BS: Some aspect of human sparganosis in Korea. *The Korean Journal of Parasitology* 13: 60-77, 1975
- 5) 古本福市, 西廻和春, 朝倉 晃, 辻 守康: 乳腺腫瘍を形成したマンソン孤虫症の1例. 広島医 31: 118, 1978
- 6) 林 正高: 寄生虫による髄膜炎, 脳炎. 内科 40: 765-770, 1977
- 7) 五十嵐信一, 池田栄佑, 辻本恵子, 三浦一浩: マンソン孤虫症と思われる1例. 皮膚臨床 14: 197-204, 1972
- 8) 岩田正俊, 甲斐田健治郎, 木船梯嗣: マンソン裂頭条虫 *Diphyllobothrium erinacei* (Rudolphi, 1819) Faust, Campbell, et Kellogg, 1929 の成虫の人体寄生第2例. 久留米医学会誌 34: 291-297, 1971
- 9) 岩田正俊, 松田鎮雄, 桐本孝次, 向井清悟: マンソン裂頭条虫の成虫の人体寄生例. 広島医 21: 152-158, 1967
- 10) 桂 重次, 鈴木二郎, 和田徳男: 我国脳外科に於ける脳腫瘍の統計. 脳と神 10: 311-319, 1958
- 11) 小松崎鴻, 川島 精, 川島均二: 眼窩より剔出したマンソン裂頭条虫の擬充尾虫の二例について. 眼臨医報 61: 749-750, 1968
- 12) 黒岩 耕: 脳に寄生せるプレロケルコイド. 福岡医誌 43: 275-278, 1952
- 13) Lee CW, Sohn K: A case of *Sparganum mansonii* in the spinal canal. 大韓外科学会雑誌 7: 155-158, 1965
- 14) 峯浦一喜, 森 照明, 和田徳男: 脳マンソン孤虫症. 脳神経外科 9: 175-178, 1981
- 15) 光戸 勇, 松本録一, 赤羽紀子, 吉村裕之, 近藤力王至: マンソン孤虫症の2例. 皮膚臨床 20: 470-471, 1978
- 16) 向井秀樹, 山手哲明, 斎藤隆三, 伊藤洋一: マンソン裂頭条虫症. 臨皮 31: 551-555, 1977
- 17) 西塚憲次, 守田 潔, 大石正夫: 眼球結膜下に寄生するマンソン孤虫症の1例. 臨眼 32: 1404-1405, 1978
- 18) 岡村一郎, 富田精一郎, 角田圭子, 浜田恭子, 施 安山, 小山和作: マンソン裂頭条虫 "*Diphyllobothrium erinacei* (Rudolphi 1819) Faust, Campbell, et Kellogg, 1929" 成虫の人体寄生. 熊本医学会誌 46: 448-457, 1972
- 19) Park SH, Rhee JD, Kang SK, Kim JK: A case report of *Sparganum mansonii* in the spinal canal (in Korean). *Journal of Korean Neurosurgical Association* 1: 204-207, 1972
- 20) Rywlin AW, Beck JW, Snyder GB: *Sparganosis* in Florida. *Arch Derm (Chicago)* 97: 425-427, 1968
- 21) 竹内 清: 脳ニ寄生セル「プレロセルコイド」ノ一例. 日病理会誌 7: 611-620, 1918

- 22) Tansurat P: Sparganosis, in Marcial-Rojas RA (ed): *Pathology of Protozoal and Helminthic Disease*. Huntington, New York, RE Krieger, 1975, pp 585-591
- 23) Wirth WA, Farrow C: Human sparganosis —Case report and review of the subject. *JAMA* 177: 6-9, 1961
- 24) 山口富雄(司会): 顎口虫症および旋毛虫症 —とくに最近における発症を中心に—. 第52回日本寄生虫学会大会シンポジウム座談会. 寄生虫誌 32: 2-5, 1983
- 25) 吉田幸雄: 図説人体寄生虫学. 東京, 南山堂, 1977, pp162-168
- [別刷請求先: 〒374 群馬県館林市成島262-1, 館林厚生病院脳神経外科, 中島英雄]