

症例報告

先天性横隔膜ヘルニア術後で脾臓低形成があり *Streptococcus pneumoniae* による細菌性髄膜炎を 発症した症例

時 友 陽 菜¹⁾ 岡 田 広¹⁾ 山 下 由理子¹⁾
成 瀬 裕 紀¹⁾ 森 雅 人¹⁾

要旨 細菌性髄膜炎は死亡率が高く、後遺症も残る可能性がある重症な感染症である。近年、小児の肺炎球菌ワクチンの定期接種化により細菌性髄膜炎の発症が減少しているが、ワクチンに含まれない血清型の肺炎球菌による髄膜炎はいまだに遭遇する。髄膜炎のような侵襲性肺炎球菌感染症のリスクとして脾臓機能低下は重要な因子である。先天性横隔膜ヘルニア修復術の既往があり、肺炎球菌性髄膜炎を発症して脾臓低形成が認められた症例を経験した。先天性横隔膜ヘルニアの既往がある児では、侵襲性肺炎球菌感染症のリスクを把握するためにも、脾臓のサイズの経過観察を行うなどの対応が必要であると考えられる。

はじめに

細菌性髄膜炎は、定期予防接種の普及に伴い減少傾向にある。しかし、発症すると後遺症や死亡するリスクも高い疾患である。日本では2013年に肺炎球菌ワクチンが定期接種化され、ワクチンに含まれる血清型による感染症は減少した一方で、ワクチンに含まれていない血清型による感染症は発生が続いている。肺炎球菌に感染するリスクの一つとして脾臓機能低下があげられる。

脾臓機能低下の原因として先天的なものには無脾症や脾臓低形成がある。後天的な原因としては脾臓摘出や、先天性横隔膜ヘルニアに伴う胸腔への臓器脱出や先天性横隔膜ヘルニア術後の脾梗塞なども要因となりうることが知られている。先天性

横隔膜ヘルニア修復後に合併する脾臓低形成も考えられるが、報告数は少なく先天性横隔膜ヘルニアの診療ガイドラインなどにも明確な記載はなく、正確な発症頻度は不明である。

今回、先天性横隔膜ヘルニア術後に脾臓低形成をきたし、肺炎球菌性髄膜炎を発症した症例を経験した。

I. 症 例

症例：1歳4か月、女児

主訴：発熱，意識障害

既往歴：先天性横隔膜ヘルニア（生後2日目に手術），新生児遷延性肺高血圧症

アレルギー歴：なし

予防接種歴：Hib 4回，沈降13価肺炎球菌結合

Key words：肺炎球菌性髄膜炎，先天性横隔膜ヘルニア，脾臓低形成，侵襲性肺炎球菌感染症

1) 松戸市立総合医療センター小児救命救急センター小児科

連絡先：時友陽菜 〒270-2296 松戸市千駄堀993-1 松戸市立総合医療センター小児科

表 入院時検査所見

【血液検査】		TP	5.5 g/dL	〈静脈血液ガス検査〉	
〈血球算定〉		Alb	2.9 g/dL	pH	7.377
白血球	13,200/μL	T-Bil	0.54 mg/dL	pCO ₂	29.7 mmHg
好中球	76 %	AST	152 U/L	Glu	137 mg/dL
リンパ球	14 %	ALT	113 U/L	Lac	2.1 mmol/L
赤血球	390 万/μL	LDH	1,005 U/L	【髄液検査 (前医)】	
ヘモグロビン	10.1 g/dL	CK	1,247 U/L	細胞数	78/μL
血小板	7.1 万/μL	Na	135 mEq/L	単核球	59 %
〈凝固〉		K	3.4 mEq/L	多核球	41 %
PT-INR	1.06	Cl	100 mEq/L	蛋白	191 mg/dL
APTT	26.3 sec	NH ₃	10 μg/dL	糖	0 mg/dL
D-dimer	406.3 μg/mL	CRP	21.21 mg/dL	【細菌学的検査】	
Fibrinogen	369 mg/dL	プロカルシトニン	21.89 ng/mL	髄液グラム染色	グラム陽性双球菌
〈生化学〉		IgG	715 mg/dL	髄液培養	<i>S. pneumoniae</i> *3+
BUN	9.9 mg/dL	IgA	47 mg/dL	血液培養	<i>S. pneumoniae</i> 陽性
Cre	0.21 mg/dL	IgM	138 mg/dL	莢膜血清型	10 A

薬剤感受性〔* () 内は Minimum Inhibitory Concentration 値、濃度単位：μg/mL〕S : Susceptible, R : Resistant
penicillin G : S (<0.03), cefotaxime : S (0.25), ceftazidime : S (0.25), meropenem : S (<0.12), minocycline : R (>4), vancomycin : S (0.5), chloramphenicol : S (<4), azithromycin : R (4), ceftriaxone : S (0.25)

型ワクチン (PCV13) 4 回, B 型肝炎 3 回, ロタウイルス 2 回, 4 種混合 (ジフテリア, 百日咳, 急性灰白髄炎, 破傷風) 3 回, BCG1 回, 日本脳炎 2 回, 麻疹・風疹混合 1 回, 水痘 1 回

出生歴 : 在胎 39 週 3 日で出生, 出生体重 2,640 g, アプガースコア 1 分 7 点, 5 分 7 点, 経膈分娩, 新生児自動聴性脳幹反応は両側 pass

出生時より SpO₂ 80% 程度と呼吸障害あり, 生後 2 時間で呼吸障害の増悪を認め当院へ転院搬送となった。気管挿管, 人工呼吸器管理を行い, X 線で横隔膜ヘルニアを認めたため他院へ転院搬送した。生後 2 日で胸腹裂孔ヘルニアに対して手術を施行された。脱出臓器は小腸, 結腸, 脾臓であった。前医での術中所見では脾臓の形態や大きさに異常は指摘されなかった。術後経過は良好で肺高血圧症の増悪もなく, 術後 22 日目に退院後のフォローアップを行うことも踏まえて自宅に近い当院へ転院し, 術後 30 日目に自宅退院した。

現病歴 : 入院 3 日前に発熱があり近医小児科クリニックを受診し, 経過をみられていた。

入院 2 日前に間欠性けいれんが複数回あり前医を受診し, 有熱時けいれん群発として経過観察となった。

入院 1 日前も発熱が持続しており, 意識障害も認めたため前医に救急搬送された。瞳孔 4 mm/4

mm, 対光反射は緩慢, 不穏状態でありけいれんが持続していると判断され, ミダゾラムを投与された。その後, 視線は合うが傾眠傾向となり急性脳症としてメチルプレドニゾロン 30 mg/kg を投与された。その後も心拍数 170/分の頻脈がみられ, 精査・集中治療目的に当院に転院搬送となった。

入院時現症 : 身長 75 cm, 体重 9.5 kg. 体温 40.2 °C, 心拍数 169/分, 血圧 108/67 mmHg, SpO₂ 100%, 呼吸数 52 回/分, GCS 8 点 (E2V1M5). 項部硬直あり, 努力呼吸なし, 紫斑なし, 末梢冷感あり, CRT 延長, 下肢に網状皮斑あり, 胸腹部所見は特記すべき所見なし

入院時検査所見 (表) : 血液検査では白血球数 13,200/μL (好中球 76%), CRP 値 21.21 mg/dL, プロカルシトニン値 21.89 ng/dL と炎症反応の上昇を認めた。Howell Jolly 小体はみられなかった。髄液細胞数は 78/μL (単核球 59%, 多核球 41%) と上昇していた。また, 血液培養, 髄液培養両方の由来株から莢膜膨化法により肺炎球菌血清型 10 が検出された。10A は PCV 13, PCV 15 には含まれないが PCV 20 に含まれる血清型である。

腹部超音波検査 (入院 10 日目) : 脾臓は長径 37.8 mm (1~2 歳児の正常脾臓サイズは 48.5~76.5 mm)¹⁾, 脾臓低形成あり, その他臓器に特記

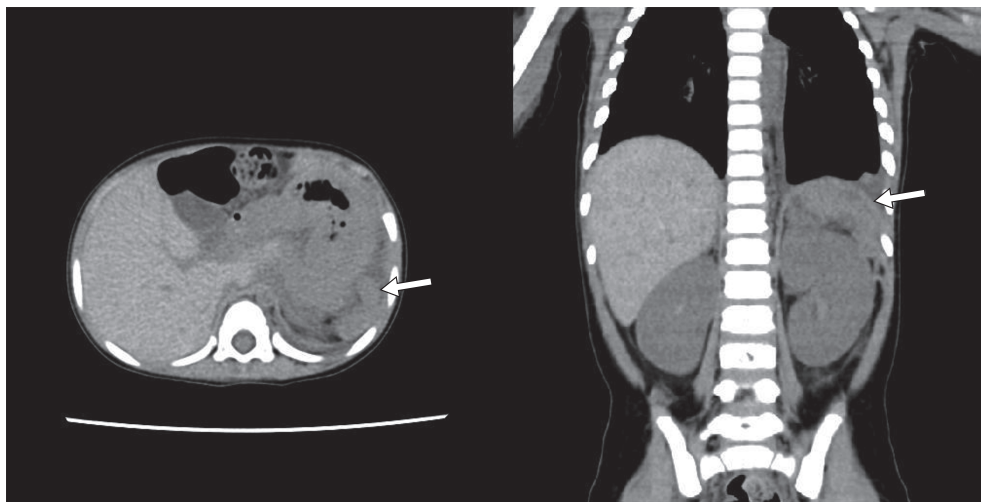


図1 胸腹部CT検査

脾臓は3×0.9 cm大、菱縮様、脾臓を矢印で示した。

所見なし、膿瘍形成なし

頭部CT検査（入院1日目）：頭蓋内出血や占拠性病変なし、浮腫は明らかではない。

胸腹部CT検査（図1）：脾臓の低形成を認める。

頭部MRI検査：頭蓋内に膿瘍や水腫の形成はなし。両側副鼻腔炎と左の乳頭洞内に液体貯留を認める。小脳橋角部、聴神経に明らかな異常を認めない。

聴性脳幹反応（auditory brainstem response : ABR）検査（入院15日目）：左耳：50 dBまでV波を認めるが40 dBにおいてV波不明瞭，右耳：30 dBまでV波を認める。（退院2か月後）左耳：90 dBでI波の描出不良，50 dBまでV波を認める。40 dBにおいてV波潜時延長あり不明瞭，右耳：30 dBでV波を認める。

入院後経過（図2）：入院日に、前医での髄液迅速検査で *Streptococcus pneumoniae* が陽性、細胞数上昇、糖低下が判明していたため細菌性髄膜炎と考えセフトリアキソン（ceftriaxone : CTRX）120 mg/kg/日、バンコマイシン（vancomycin : VCM）60 mg/kg/日、デキサメタゾン0.6 mg/kg/日で加療を開始した。中枢神経保護を目的に解熱薬、電解質補正、抗けいれん薬、ビタミン投与も開始した。デキサメタゾンは2日間投与し終了した。同日当院での血液培養検査と髄液培養検

査から細菌の陽性報告があり、入院3日目に感受性の結果からアンピシリン（ampicillin : ABPC）400 mg/kg/日単剤に変更した。肺炎球菌感染のリスク因子と侵入門戸の検索目的で行った腹部超音波検査と腹部単純CT検査で脾臓の低形成を認めた。入院8日目に一度解熱したが入院10日目から再度発熱があった。採血検査やエコー検査からは膿瘍を疑う所見はなく、薬剤熱の可能性を考えABPCをCTRX 120 mg/kg/日に変更したところ解熱した。計14日間抗菌薬投与を行った。その後、脾機能低下に対する予防内服としてアモキシシリン（amoxicillin : AMPC）20 mg/kg/日の連日内服を開始した。合併症検索のために行ったABRで左の聴力低下を疑う所見があった。入院19日目に退院し、抗菌薬の予防内服を継続し、退院後外来でPCV20を接種した。その後の外来で聴力や発達のフォローアップを行っている。

II. 考 察

先天性横隔膜ヘルニア術後、脾臓低形成をきたし、肺炎球菌性髄膜炎を発症した症例を経験した。

細菌性髄膜炎は死亡率・後遺症を残すことも多く、重症な感染症にあげられる。近年の小児の細菌性髄膜炎の致死率は5%前後であり、約15%に感音性難聴やてんかん発作、水頭症、知的障害、

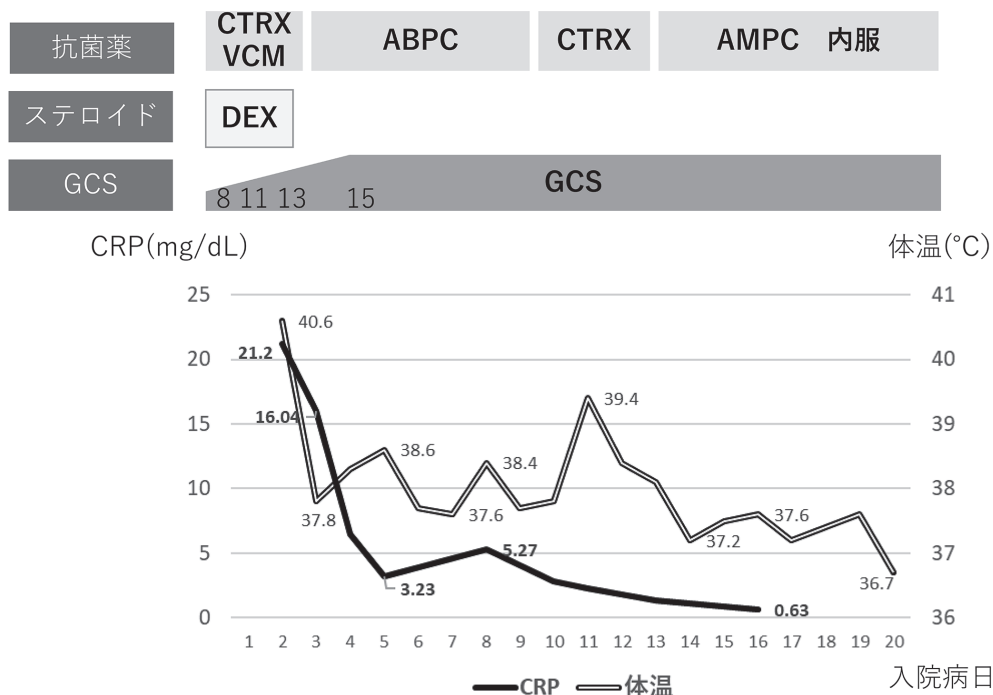


図2 入院後経過

入院後の治療や意識レベルの推移を示した。

CTRX : ceftriaxone, VCM : vancomycin, ABPC : ampicillin, AMPC : amoxicillin, DEX : dexamethasone

高次機能障害などの後遺症を残すとされている。小児の起因菌として *S. pneumoniae*, *Haemophilus influenzae* type b が多かったが、これらによる侵襲性感染症を予防可能なワクチンの定期接種化により、これらの細菌によって引き起こされる細菌性髄膜炎は近年減少している。しかし、ワクチンに含まれない血清型による肺炎球菌性髄膜炎は発生が続き、その割合が増えている^{2~4)}。今回の原因菌である *S. pneumoniae* は乳幼児の感染症のなかで主要な病原体の一つであり、ときに後遺症を残すような重篤な感染症を引き起こす。日本ではPCV7が2013年に定期の予防接種に追加され、その後PCV13に変更され、2024年10月以降は、PCV20とPCV15が定期接種として接種可能である(PCV20の接種が推奨されている)^{5,6)}。ワクチン接種後にもかかわらず細菌性髄膜炎に罹患した児に関しては基礎疾患の検索が重要であるとする報告もあり、感染症のリスク因子や侵入門戸の検索が必要である⁷⁾。*S. pneumoniae* に罹患

しやすい基礎疾患として機能的または解剖学的無脾症、免疫不全症、HIV感染症、ネフローゼ症候群、慢性腎臓病、血液悪性腫瘍、医原性免疫抑制などの免疫低下状態、脳脊髄液漏出や人工内耳などの解剖学的バリアの欠陥、慢性心疾患、慢性肺疾患、糖尿病、慢性肝疾患、慢性腎臓病などの慢性疾患などがあげられる⁸⁾。本症例では脾臓の低形成があり、脾機能低下による免疫低下状態が肺炎球菌の感染に影響したと考えた。

脾機能が低下することの原因として、脾臓摘出後、肝疾患、血液疾患、血管障害、消化器疾患、自己免疫疾患、感染症、浸潤性疾患などがあげられる^{9,10)}。本症例でみられたように横隔膜ヘルニアに関連した脾臓低形成も脾機能低下の原因となりうると考えられる。

先天性横隔膜ヘルニアの際に脱出する腹腔内臓器には小腸、結腸、肝臓、胃、十二指腸、脾臓、膵臓、腎臓などがある。年間発症数は国内で約160~170例と報告されている。先天性横隔膜へ

ルニアによる脾臓脱出が後天的な脾臓低形成の要因となる可能性が指摘されている¹¹⁾。新生児先天性横隔膜ヘルニアのガイドラインに記載はないが、横隔膜ヘルニアの術後に遊走脾や脾梗塞となる症例も報告されており、同様の機序で脾臓の低形成は起こりうると考えられる^{12, 13)}。本症例では前医の術中所見から脾臓低形成の指摘はなく先天的な低形成は否定的であった。そのため、先天性横隔膜ヘルニア術後に後天的に退縮して脾臓低形成をきたし、それによる免疫低下で肺炎球菌性髄膜炎を発症したものと推察された。先天性横隔膜ヘルニアの児の診療に際しては、術前から周術期にかけての脾機能確認に加えて、術後の脾臓サイズの確認など、脾機能の継続的評価が重要である。

脾機能低下者には感染症を予防するために肺炎球菌、Hib、髄膜炎菌に対するワクチン接種が重要である。肺炎球菌感染の予防としては、PCV20またはPPSV23（23価肺炎球菌多糖体ワクチン）を接種するなどワクチンの追加接種や抗菌薬の予防内服、発熱時の早期対応が推奨されている^{14, 15)}。本症例に対しては、予防内服としてAMPC 20 mg/kg/日の内服を開始した上で、退院後にPCV20を接種した。先天性横隔膜ヘルニアの症例を診療する際には、これらの対応を行うことを留意すべきである。

本報告の限界としては、脾臓低形成以外にIgGサブクラス、リンパ球サブセット、補体価などの免疫学的評価が不十分であること、Howell Jolly小体は認めずシンチグラフィなどの検査は施行していないことから、脾機能の評価が不十分である可能性があげられる。

結 語

肺炎球菌性髄膜炎による有熱時けいれん重積の精査の過程で脾臓低形成が判明した症例を経験した。脾臓低形成は先天性横隔膜ヘルニアで脾臓が脱出していたことや周術期に何らかの影響が脾臓に生じたことが原因と推察された。

退院後にPCV20を接種し、抗菌薬の予防を開始し、経過観察中である。先天性横隔膜ヘルニアの児では、周術期に異常を認めなくても、後天的に脾臓低形成をきたし、侵襲性肺炎球菌感染症の

リスクが生じる可能性に注意が必要である。

本症例の論文発表に関して保護者に説明を行い、承諾を得た。

日本小児感染症学会の定める利益相反に関する開示事項はありません。

謝 辞

肺炎球菌の血清型の解析を行っていただいた千葉大学真菌医学研究センター感染症制御分野の石和田稔彦先生、大畑美穂子様に深謝いたします。

文 献

- 1) Calle-Toro JS, Back SJ, Viteri B, et al : Liver, Spleen, and Kidney Size in Children as Measured by Ultrasound: A Systematic Review. *J Ultrasound Med* 39 : 223-230, 2020
- 2) 細菌性髄膜炎の疫学的現況, 細菌性髄膜炎の転帰・後遺症. 日本神経学会, 日本神経治療学会, 日本神経感染症学会 (監), 「細菌性髄膜炎診療ガイドライン」作成委員会 (編): 細菌性髄膜炎診療ガイドライン 2014. 南江堂, 東京, 2014, 2-35
- 3) Takeuchi N, Chang B, Ishiwada N, et al : Nationwide population-based surveillance of invasive pneumococcal disease in children in Japan (2014–2022): Impact of 13-valent pneumococcal conjugate vaccine and COVID-19 pandemic. *Vaccine* 54 : 127138, 2025
- 4) 小児・成人の侵襲性肺炎球菌感染症の疫学情報. 国立感染症研究所. <https://ipd-information.com/child/overview/> (参照 2025/11/09)
- 5) 厚生労働省: “小児に対する肺炎球菌ワクチンについて”. 第57回厚生科学審議会予防接種・ワクチン分科会 資料. <https://www.mhlw.go.jp/content/10900000/001281992.pdf> (参照 2025/11/10)
- 6) 厚生労働省: “子どもの肺炎球菌ワクチン”. [https://www.mhlw.go.jp/stf/seisakunitsuite/bunya/kenkou_iryou/kenkou/kekaku-kansenshou/yobou-sesshu/vaccine/pneumococcus-child/index.html](https://www.mhlw.go.jp/stf/seisakunitsuite/bunya/kenkou_iryou/kenkou/kekaku-kansenshou/yobou-sesshu/vaccine/pneumococcus-child/index.html#:~:text=%EF%BC%9Ehttps://www.mhlw.go.jp/stf/seisakunitsuite/bunya/kenkou_iryou/kenkou/kekaku-kansenshou/yobou-sesshu/vaccine/pneumococcus-child/index.html) (参照 2025/

- 11/10)
- 7) 杉浦英恵, 伊川泰広, 井上なつみ, 他: 頭蓋底骨折の1年半後に細菌性髄膜炎を発症した一男児例. 小児感染免疫 29: 39-47, 2017
 - 8) Chidiac C: Pneumococcal infections and adult with risk factors. Med Mal Infect 42: 517-524, 2012
 - 9) Lenti MV, Luu S, Carsetti R, et al: Asplenia and spleen hypofunction. Nat Rev Dis Primers 8: 71, 2022
 - 10) 大野陽哉, 細川貴弘, 鈴木 純, 他: 脾臓低形成を認めた硬膜外膿瘍合併肺炎球菌性髄膜炎の1例. 日本内科学会雑誌 110: 1482-1486, 2021
 - 11) “新生児先天性横隔膜ヘルニア (CDH) 診療ガイドライン第2版 (2021)” 令和3年度厚生労働科学研究費補助金事業「呼吸器系先天異常疾患の診療体制構築とデータベースおよび診療ガイドラインに基づいた医療水準向上に関する研究」新生児先天性横隔膜ヘルニア研究グループ (Japanese CDH Study Group). cdh_guideline_02-3.pdf (参照 2025/11/10)
 - 12) Mehta A, Vana PG, Glynn L: Splenic torsion after congenital diaphragmatic hernia repair: case report and review of the literature. J Pediatr Surg 48: e29-31, 2013
 - 13) 瀧本篤朗, 津田知樹, 武内悠馬, 他: 腹腔鏡補助下脾固定術を施行した先天性横隔膜ヘルニア術後遊走脾の1例. 日本小児外科学会雑誌 58: 62-67, 2022
 - 14) Ladhani SN, Fernandes S, Garg M, et al: Prevention and treatment of infection in patients with an absent or hypofunctional spleen: A British Society for Haematology guideline. Br J Haematol 204: 1672-1686, 2024
 - 15) 日本小児科学会: “任意接種ワクチンの小児 (15歳未満) への接種”. 日本小児科学会 予防接種・感染症対策委員会. https://www.jpeds.or.jp/uploads/files/20251024_ninni.pdf (参照 2025/11/10)

A case of pneumococcal meningitis with congenital diaphragmatic hernia and hypoplastic spleen

Haruna TOKITOMO¹⁾, Hiroshi OKADA¹⁾, Yuriko YAMASHITA¹⁾,
Yuki NARUSE¹⁾, Masato MORI¹⁾

1) *Department of Pediatrics, Matsudo City General Hospital*

Bacterial meningitis is a severe infectious disease with a high mortality rate and the potential for sequelae. While its incidence has decreased since the introduction of pneumococcal conjugated vaccine into the routine immunization program, pneumococcal meningitis is still caused by serotypes not included in the vaccine. Splenic hypofunction is an important risk factor for invasive pneumococcal disease such as meningitis. This study reports a case with a history of congenital diaphragmatic hernia repair that developed pneumococcal meningitis, and was found to have splenic hypoplasia. In children with a history of congenital diaphragmatic hernia, it is considered necessary to evaluate the size of the spleen over time to assess the risk of developing invasive pneumococcal diseases.

Key words: pneumococcal meningitis, congenital diaphragmatic hernia, splenic hypoplasia, invasive pneumococcal disease

(受付: 2025 年 11 月 22 日, 受理: 2026 年 2 月 16 日, 受付 No.1127)

* * *