

原著

脳病変を契機に診断に至ったウエステルマン肺吸虫による脳肺吸虫症の1例

鶴岡 純一郎^{1,2)} 三宅 哲雄^{1,2)} 宮地 悠輔^{1,2)} 中村 幸嗣²⁾
 橋本 修二^{1,2)} 立山 悟志²⁾ 栗原 八千代^{1,2)} 徳竹 忠臣²⁾
 石田 明^{3,4)} 駒瀬 裕子^{3,4)} 瀧 正志^{1,2)} 加藤 達夫^{2,5)}

要旨 症例は7歳の女兒。脳腫瘍性病変を認め、脳腫瘍を疑い開頭摘出術を施行したが、病理組織像は脳腫瘍に合致せず、最終的に脳病変を伴ったウエステルマン肺吸虫症の免疫血清 ELISA 診断に至った。脳肺吸虫症は頭痛、嘔吐、けいれんなど脳腫瘍に似た症状や画像所見を呈するため、脳腫瘍性病変を認めた際の鑑別疾患として考慮すべきである。末梢血好酸球数、血清 IgE 値に注目し、摂食歴、渡航歴などを含めた詳細な病歴聴取が重要となる。

はじめに

肺吸虫症は東アジアから東南アジア、インドなどに広く分布している肺吸虫属の寄生虫感染によって、亜急性から慢性に経過する人獣共通感染症である^{1,2)}。肺を主な標的臓器とするが、人体内で複雑な移行経路をとるため脳をはじめとした肺外病変をきたすことがある。今回、脳病変に伴う初発症状を認め、最終的にウエステルマン肺吸虫症の診断に至った症例を経験したので報告する。

I. 症 例

症例：7歳、女兒。

主訴：けいれん、頭痛、嘔吐、右眼痛。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：母はタイ人で、年2回ほど児とともにタイへ帰郷している。同胞なし。

現病歴：受診14日前、約5分間の全身性間代性けいれんが出現した。その後、数日ごとに頭痛、嘔吐、右眼痛を認めたため当院を受診し、頭部MRI検査において右頭頂葉から後頭葉にかけて腫瘍性病変を認めたため、精査加療目的に入院となった。

入院時身体所見：体温 36.3°C、心拍数 96 回/分、呼吸数 24 回/分、血圧 94/50 mmHg。左下 1/4 の同名半盲を認めた。うっ血乳頭は認めなかった。胸部・腹部およびその他の神経学的所見に異常を認めなかった。

入院時検査所見：血液検査において白血球数は 7,700/ μ l で、好酸球数が 1,694/ μ l (22%) を

Key words：ウエステルマン肺吸虫症、脳肺吸虫症、脳腫瘍、高 IgE、好酸球増多

- 1) 聖マリアンナ医科大学横浜市西部病院小児科
〔〒241-0811 横浜市旭区矢指町 1197-1〕
- 2) 聖マリアンナ医科大学小児科
- 3) 聖マリアンナ医科大学横浜市西部病院呼吸器内科
- 4) 聖マリアンナ医科大学呼吸器内科
- 5) 国立成育医療研究センター

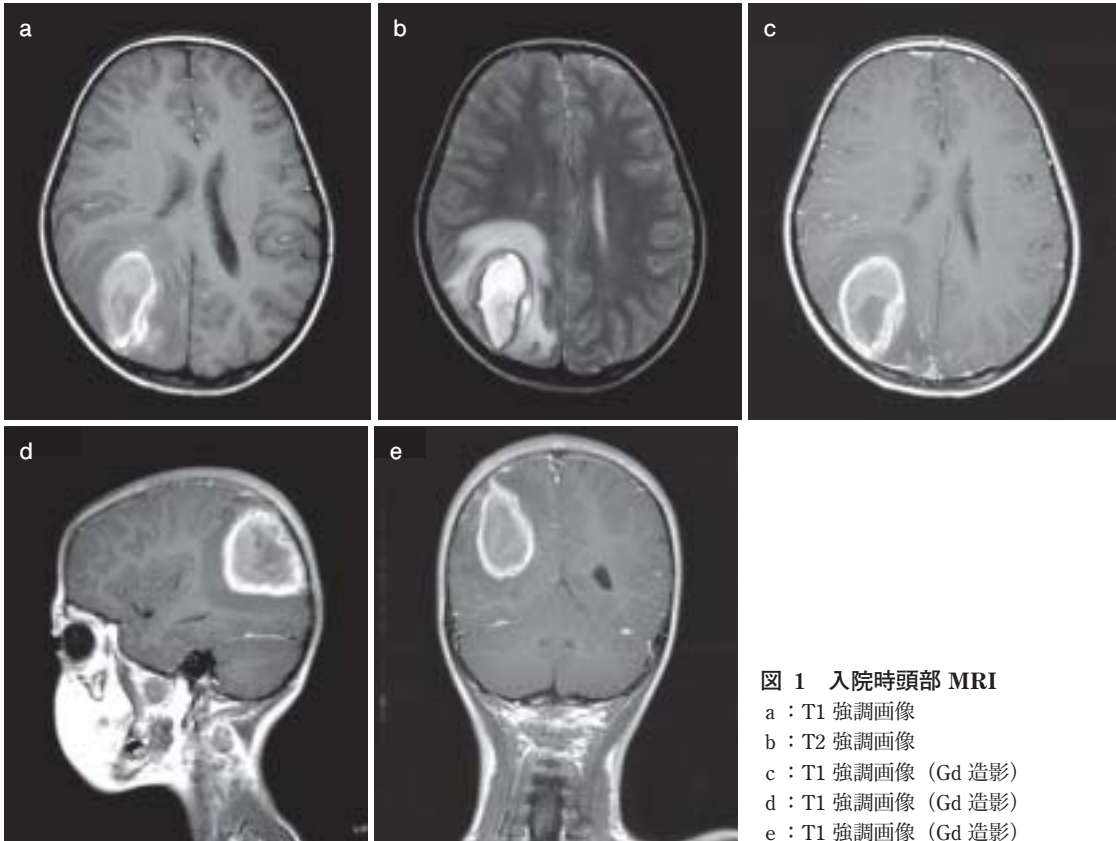


図 1 入院時頭部 MRI

- a : T1 強調画像
- b : T2 強調画像
- c : T1 強調画像 (Gd 造影)
- d : T1 強調画像 (Gd 造影)
- e : T1 強調画像 (Gd 造影)

占めていた。胸部単純 X 線検査では肺野に異常を認めなかった。頭部 MRI 検査において、右頭頂葉から後頭葉にかけて脳実質内に周囲に浮腫性変化を伴う 4.8 cm×3 cm 大の腫瘤性病変を認め、T1 強調画像では病変内部は不均一な軽度高信号、T2 強調画像では高信号を示した。また、ガドリニウム (Gd) を用いた T1 強調画像ではリング状の造影効果を認めた (図 1)。

入院および外来経過 (図 2) : 脳腫瘍を疑い受診後 7 日目に開頭摘出術を施行したが、病理組織像は異常な動静脈の増生と炎症性の肉芽腫性変化のみで、脳腫瘍に合致せず確定診断に至らなかった (図 3)。しかし、摘出術により症状の消失を認めため、受診後 29 日目に退院、以降外来経過観察とした。受診後 3 カ月ほど経過した時点で、児の母が持続する咳嗽と血痰を主訴に呼吸器内科を受診し、喀痰細胞診で好酸球主体の炎症細胞を伴った虫卵が検出された。国立感染症研究所で実

施した酵素抗体法 (ELISA) での血清中のウエステルマン肺吸虫 IgG 抗体および宮崎肺吸虫 IgG 抗体はいずれも陽性を示したが、虫卵の DNA 解析の結果、3 倍体のウエステルマン肺吸虫による胸部肺吸虫症と診断された。児も母と一緒に生のサワガニを用いたタイの郷土料理を摂食していたことから、再度精査を行ったところ、母と同様、ELISA で血清中のウエステルマン肺吸虫 IgG 抗体および宮崎肺吸虫 IgG 抗体がいずれも陽性を示した。脳組織から虫体あるいは虫卵の検出はされなかったが、摂食歴の同じ母の診断を基に児の臨床症状などを総合して、ウエステルマン肺吸虫による脳肺吸虫症と確定診断した。なお、喀痰や糞便を用いた虫体・虫卵検査は実施されなかった。また、頭部 MRI 検査において以前と同部位に新たに多発した腫瘤性病変を認め、胸部単純 X 線検査および胸部 CT 検査においても右中下肺野に空洞性病変を認めた。一貫して児の臨床症状は安

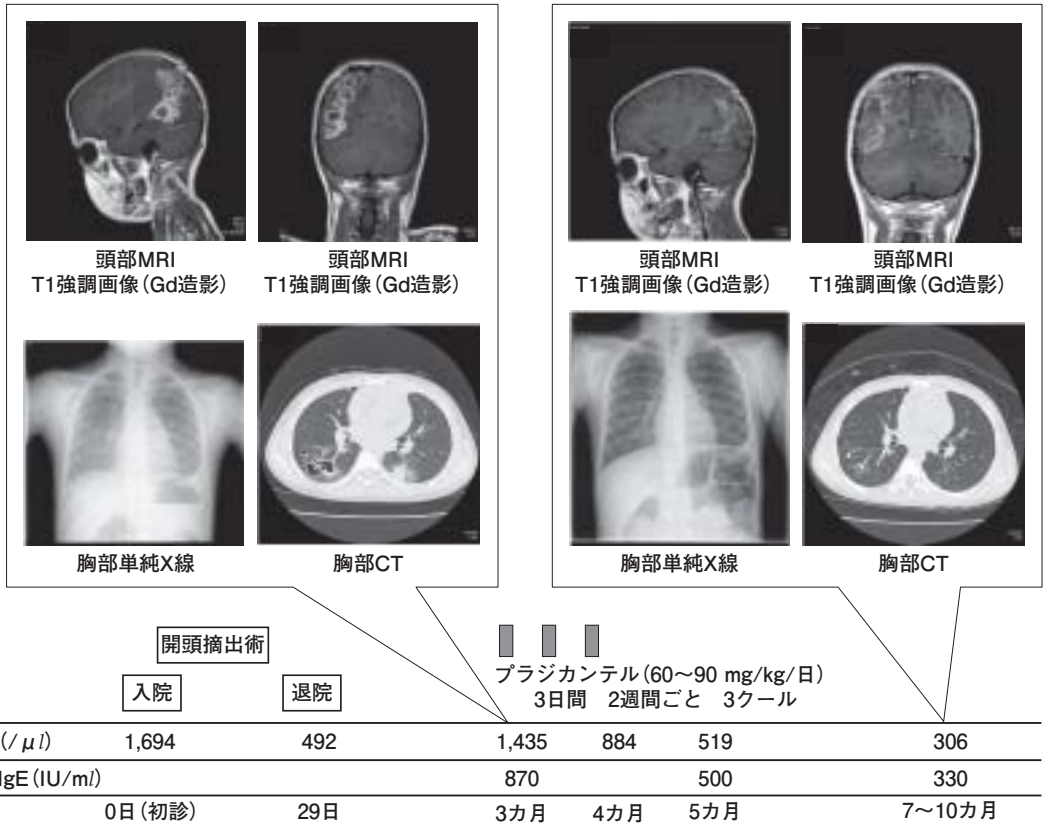


図 2 入院および外来経過

定していたが、主に画像所見の経過を参考にプラジカンテルの内服 3 日間を 2 週間ごとに計 3 クール施行し病変は縮小した。また、併せて末梢血好酸球数の減少および血清非特異的 IgE 値の低下を認め、以降 2 年間再発はみられていない。なお、児と母の周囲で一緒に生のサワガニを摂食した者や同様の症状を呈した者はいなかった。

II. 考 察

肺吸虫症は肺吸虫属の寄生虫感染によって起こる亜急性から慢性に経過する感染症であり、わが国のほか東アジアから東南アジア、インドなどに広く分布している。肺吸虫の第 1 中間宿主はカワナなどの淡水産の巻貝、第 2 中間宿主はモズクガニやサワガニなどの淡水産甲殻類である。第 2 中間宿主のカニ類にはメタセルカリアと呼ばれる感染型の虫体が寄生しており、ヒトへの感染はカ



図 3 脳病理組織像 (HE 染色, 200 倍)

ニ類を生、または十分に加熱されない状態で摂食することにより成立する。また、待機宿主であるイノシシなどの肉を生食して感染することもある。肺吸虫の終宿主は主にイヌ科、ネコ科の野生

哺乳動物であるが、ヒトも終宿主になる人獣共通感染症である。わが国に分布しているのはウエステルマン肺吸虫と宮崎肺吸虫であるが、大多数はウエステルマン肺吸虫感染である。タイにおいてもウエステルマン吸肺虫が広く分布している¹⁻³⁾。1980年代後半から国内の新規患者が増加傾向にあり、2000年前後からは国際化時代を反映して中国やタイからの在邦外国人患者の増加もみられている⁴⁾。

肺吸虫は肺を標的とする寄生虫で、通常「小腸内→腹腔→横隔膜→胸腔→肺実質」という移行経路をとるが、その経路が複雑であるため途中の各所で停滞あるいは近隣臓器（脳、肝臓、腎臓、腸間膜、横隔膜、縦隔など）に迷入して異所寄生することがあり、これらを一括して肺外吸虫症という¹⁾。なかでも脳肺吸虫症は最も多く、文献により肺吸虫症全体の1.74%⁵⁾、0.8%⁶⁾との報告がある。脳肺吸虫症では比較的緩やかに頭痛、嘔吐、けいれん、麻痺など脳腫瘍に似た症状を呈する。

本症例は当初は脳腫瘍を疑い開頭摘出術を施行した。術後、症状は消失したものの初期に確定診断には至らず、ウエステルマン肺吸虫症との診断に至ったのは受診後3カ月ほど経過してからであった。脳肺吸虫症の診断には、まずは呼吸器症状の有無にかかわらず、淡水産甲殻類やイノシシ肉などの生食歴がないか、流行地への渡航歴がないかなどの詳細な病歴聴取が重要となる。また、一般的に寄生虫感染で認められる末梢血好酸球数の増加および血清IgE値の上昇にも注意が必要である。床島ら⁷⁾は、ウエステルマン肺吸虫症の臨床的検討を行い、末梢血好酸球数の増加を23例中16例に、血清IgE値の上昇を18例中12例に認めたと報告している。加えて、画像的特徴としてZhangら⁸⁾は、活動早期の最も一般的な頭部MRI所見としてさまざまな程度の不規則な出血像を、Chaら⁹⁾は、早期患者の約半数の頭部CTおよびMRI所見でリング状造影効果を伴った塊状の病変を認めたと報告している。寄生虫疾患における確定診断は、虫体あるいは虫卵の直接証明が最も信頼できる。胸部肺吸虫症と診断された母の喀痰中から虫卵が検出されたが、近年の症例は感染虫体数が少なく、虫卵の検出率は高くない²⁾。

現在、肺吸虫症の診断で最も有用であるのは酵素抗体法（ELISA）を用いた免疫血清診断であり、抗体検査で見逃すことはほとんどない²⁾。本症例もELISAによるウエステルマン肺吸虫および宮崎肺吸虫の抗体を検出した。ウエステルマン肺吸虫抗体と宮崎肺吸虫抗体は交叉反応を示しやすいが、本症例は摂食歴の同じ母の診断を基に児の臨床症状などを総合して、ウエステルマン肺吸虫による脳肺吸虫症と確定診断した。

脳肺吸虫症は、脳実質内に肺吸虫成虫が異所寄生して生じる。初期にウエステルマン肺吸虫症と診断されていなかったことから、肺吸虫成虫の有無を検査していない。しかしながら、開頭摘出術施行後、同部位に腫瘍性病変が認められた。このことから、肺吸虫の成虫が脳実質に残っていた可能性は否定できない。

Toyonagaら¹⁰⁾は、脳肺吸虫症における外科的治療の適応を過去の報告から、①発症後2年以内であること、②頭蓋内圧亢進症状があること、③脳腫瘍との鑑別が困難であること、④けいれんやてんかん発作を引き起こす局所病変があること、などとまとめている。ただし、発症後2年以内としたのは、榎藤ら¹¹⁾の、成虫がピチオノールの影響を受けない膿瘍や嚢腫のなかで多くは2年以内、あるいはそれ以上生存している可能性があり、後にその成虫が正常脳組織へ抜け出し、再び急性転化を起こすことがあり得るとする報告によるため、プラジカンテルが治療薬の主流である現在は、ピチオノールの使用を前提とした発症後2年以内という期間をそのまま適応できない可能性はある。本症例は前述の適応を概ね満たしてはいるものの、術前に適正に診断されていれば、当初からプラジカンテルによる内服治療単独もしくは外科的治療との併用の選択も可能であったと考える。

今後、肺吸虫症の新規患者増加に伴い、脳肺吸虫症に遭遇する機会が増えることが予想される。肺吸虫症に特徴的な病歴を有する患者において脳腫瘍性病変を認めた際は、脳肺吸虫症を鑑別疾患においた診療を行うことが肝要と思われる。

謝辞：本症例の診療にご協力いただきました当院脳神経外科 田口芳雄先生、小野寺英孝先生、国

立感染症研究所寄生動物部第二室 山崎浩先生に感謝いたします。

本論文の要旨は第 42 回日本小児感染症学会総会・学術集会 (2010 年 11 月, 仙台市) において発表した。

文 献

- 1) 名和行文：感染症呼吸器疾患 寄生虫感染症 (肺蠕虫症) 肺吸虫症. 日本臨牀 別冊呼吸器症候群 I : 223-226, 2008
- 2) 丸山治彦, 他：肺吸虫. 日本胸部臨牀 66 : 269-275, 2007
- 3) 丸山治彦：肺吸虫症. 化学療法の領域 24 : 1343-1350, 2008
- 4) Obara A, et al : Paragonimiasis cases recently found among immigrants in Japan. Intern Med 43 : 388-392, 2004
- 5) 岩崎 基：肺吸虫症の診断と治療—肺吸虫症 (IV) 一. 治療 44 : 2259-2268, 1962
- 6) Oh SJ : Roentgen findings in cerebral paragonimiasis. Radiology 90 : 292-299, 1968
- 7) 床島真紀, 他：ウエステルマン肺吸虫症 23 例の臨牀的検討. 日呼吸会誌 39 : 910-914, 2001
- 8) Zhang JS, et al : MRI features of pediatric cerebral paragonimiasis in the active stage. J Magn Reson Imaging 23 : 569-573, 2009
- 9) Cha SH, et al : Cerebral paragonimiasis in early active stage : CT and MRI features. AJR Am J Roentgenol 162 : 141-145, 1994
- 10) Toyonaga S, et al : Cerebral paragonimiasis—report of five cases—. Neurol Med Chir 32 : 157-162, 1992
- 11) 権藤昌澄, 他：脳肺吸虫症の 1 例—その CT 所見と早期診断・治療—. Neurologia Medico-chirurgica 19 : 1213-1218, 1979

A case of cerebral paragonimiasis caused by *Paragonimus westermani* with a brain lesion which led to a diagnosis

Junichiro TSURUOKA^{1,2)}, Tetsuo MIYAKE^{1,2)}, Yusuke MIYAJI^{1,2)}, Yukitsugu NAKAMURA²⁾, Syuji HASHIMOTO^{1,2)}, Satoshi TATEYAMA²⁾, Yachiyo KURIHARA^{1,2)}, Tadaomi TOKUTAKE²⁾, Akira ISHIDA^{3,4)}, Yuko KOMASE^{3,4)}, Masashi TAKI^{1,2)}, Tatsuo KATO^{2,5)}

- 1) *Department of Pediatrics, St. Marianna University School of Medicine, Yokohama City Seibu Hospital*
- 2) *Department of Pediatrics, St. Marianna University School of Medicine*
- 3) *Department of Respiratory Medicine, St. Marianna University School of Medicine, Yokohama City Seibu Hospital*
- 4) *Department of Respiratory Medicine, St. Marianna University School of Medicine*
- 5) *National Center for Child Health and Development*

The patient was a seven-year-old girl who presented with an encephaloma, in whom a brain tumor was suspected and a craniotomy enucleation was performed. However, the histopathological findings of the resected specimen were not consistent with a brain tumor, and the brain lesion was diagnosed as cerebral paragonimiasis caused by *Paragonimus westermani* by using immunological ELISA. This case underscores the importance of bearing in mind cerebral paragonimiasis in the differential diagnosis of encephalomas associated with the symptoms and imaging findings of brain tumor such as headache, vomiting, convulsions, etc. A careful and detailed diet and travel history should be obtained, with examination of the peripheral blood eosinophil count, serum IgE levels, etc.

(受付：2011 年 5 月 19 日, 受理：2011 年 9 月 22 日)