

症例報告

右腋窩リンパ節膿瘍に環軸椎回旋位固定を併発した1例

高橋 健一郎¹⁾ 高橋 侑利¹⁾ 志田 洋子¹⁾
安田 菜穂子¹⁾ 鈴木 葉子^{1,2)} 杉原 茂孝¹⁾

要旨 腋窩リンパ節膿瘍から環軸椎回旋位固定（AARF）を併発し、牽引治療まで要するまれな病態を経験したため報告する。症例は生来健康な7歳女児。発熱と右腋窩痛、頸部痛を主訴に第8病日に当院を受診した。胸部造影MRIで右腋窩リンパ節膿瘍と診断し、同日精査加療のため入院とした。斜頸もみられ整形外科対診し、頸椎X線写真で明らかな脱臼は認めなかった。局所麻酔下での排膿は困難であり、Ceftriaxone点滴静注で加療を開始した。数日で解熱し、膿瘍の縮小を認めた。抗菌薬は膿瘍消失を確認し、計3週間投与して終了した。膿瘍が改善しても斜頸が残存していたため第15病日に頸部CTを施行した。AARFと診断し、Glisson牽引で治癒した。各種培養で有意な病原体発育は認めなかったが、第19病日の抗ストレプトリジン-O抗体が1,500 IU/mL以上と著明な高値を認め、溶血性レンサ球菌の関与が強く疑われた。腋窩リンパ節膿瘍のように穿刺が困難な症例での血清抗体価の有用性と、速やかにAARFを診断・治療を開始することの重要性が示唆された。

はじめに

腋窩リンパ節が炎症の中心になる病態は野兔病や猫ひっかき病、小児ではBCG接種に伴ったものがあげられる。細菌性腋窩リンパ節炎や膿瘍形成は小児ではまれな病態である。加えて本症例は環軸椎回旋位固定（atlantoaxial rotatory fixation；AARF）を併発し、牽引治療を必要とした。AARFは特発性、外傷、急性上気道炎、川崎病や頸部リンパ節炎などの頸部感染症を契機に発症することが多いが¹⁾、腋窩リンパ節炎や膿瘍を契機とした症例は検索し得た限り報告されていない。腋窩リンパ節膿瘍、AARFいずれも頻繁にみる疾患ではないが、腋窩リンパ節膿瘍の診療経験、AARFが頸部

疾患以外でも発症し得ることはAARFを早期診断・治療するのに重要な知見と考え、文献的考察を加えて報告する。

I. 症 例

症例：7歳、女児

主訴：発熱、右腋窩痛、頸部痛

既往歴：感染を繰り返すエピソードや膿瘍など重症感染症の既往歴なし。

生活歴：ペット飼育なし。動物との接触エピソードなし。

現病歴：入院7日前より右腋窩痛と38.3℃の発熱を認め、数日後から斜頸を認めていた。右腋窩を痛がり首を傾けて左手で腋窩を庇うような姿勢

Key words：腋窩リンパ節膿瘍、環軸椎回旋位固定、溶血性レンサ球菌

1) 東京女子医科大学東医療センター小児科 2) 和洋女子大学家政学部健康栄養学科

連絡先：高橋健一郎 〒116-8567 東京都荒川区西尾久2-1-10 東京女子医科大学東医療センター小児科

表 検査結果

| < 血算 > | | < 迅速検査 > | |
|---------|---|-------------------------------|-----------|
| WBC | 15,000 / μ L | アデノウイルス抗原 (咽頭) | 陰性 |
| Neut | 75 % | インフルエンザ抗原 | A・B 陰性 |
| Eosi | 3 % | < 培養 > | |
| Mono | 7 % | 血液 (1set) | 陰性 |
| Lympho | 15 % | 咽頭 | 正常細菌叢 |
| Hb | 12 g/dL | | |
| Ht | 36.3 % | | |
| Plt | 49.4 \times 10 ⁴ / μ L | | |
| < 生化学 > | | | |
| Alb | 3.7 g/dL | EBV VCA IgG (FA 法) | <10 倍 |
| CRP | 2.5 mg/dL | EBV VCA IgM (FA 法) | <10 倍 |
| AST | 21 IU/L | EBV EBNA (FA 法) | <10 倍 |
| ALT | 14 IU/L | CMV IgG (EIA 法) | <2.0 |
| LDH | 272 IU/L | CMV IgM (EIA 法) | 0.41 |
| CPK | 50 IU/L | トキソプラズマ IgG (ELISA 法) | <3 IU/mL |
| BUN | 7.7 IU/L | トキソプラズマ IgM (ELISA 法) | 0.1 IU/mL |
| Cr | 0.26 IU/L | 結核菌 IFN- γ 測定 (T-SPOT) | 陰性 |
| Na | 136 mEq/L | バルトネラ属抗体 | 陰性 |
| K | 4.1 mEq/L | 好中球殺菌能 | 97.98 % |
| Cl | 100 mEq/L | 好中球貪食能 | 97.49 % |
| IgG | 1,610 mg/dL | | |
| IgM | 152 mg/dL | | |
| IgA | 133 mg/dL | | |

でいることが多かった。休日診療所や接骨院を繰り返し受診し、途中で処方された抗菌薬（詳細不明）を1日分内服していた。第6病日に当院救急外来を受診し、腋窩痛のため右上肢挙上不可、頭部は左回旋位の状態であった。血液検査でWBC 15,000/ μ L、CRP 2.40 mg/dLと炎症反応の軽度上昇を認め、鎮痛薬を処方され日中外来への再診が指示された。第8病日に当院を再診し、症状の改善を認めず、精査加療目的に入院となった。

入院時現症：身長 109.5 cm (-1.94 SD)、体重 17.1 kg (肥満度 -0.8%)、体温 38.3°C、脈拍 118 回/分、呼吸数 26 回/分。頭部は右に側屈し左回旋位で固定しており、右回旋は疼痛のため困難であった。眼球結膜充血や咽頭発赤は認めなかった。頸部リンパ節に明らかな腫脹は認めなかった。右腋窩と前胸部に自発痛があり、わずかに腫脹も認めた。発赤や熱感も認めなかった。右腋窩腫瘍は長径約 3cm、弾性軟で可動性は良好であっ

た。右肩関節屈曲は頸部痛を誘発して不可能であった。皮疹は認めなかった。右手指に擦過創を認めた。

検査所見 (表)：入院時 WBC 15,000 / μ L、CRP 2.50 mg/dL と炎症反応の軽度上昇を認め、好中球 75% と好中球優位であった。肝機能や腎機能、電解質に異常所見は認めなかった。咽頭アデノウイルス抗原迅速検査、インフルエンザ抗原迅速検査は陰性であった。第19病日の抗streptolysin-O抗体 (ASO) が 1,500 IU/mL 以上と著明な高値であった。

入院後経過 (図1)：入院時の胸部造影MRI (図2) より右腋窩リンパ節膿瘍と診断し、血液培養と咽頭培養を提出し、Ceftriaxone (CTRX) 60mg/kg/day で加療開始した。斜頸に関しては整形外科に対診し、頸椎X線写真開口位は疼痛のため条件の良い画像が撮影できず、側面像 (図3) では回旋が疑われるものの明らかな脱臼を認めないと

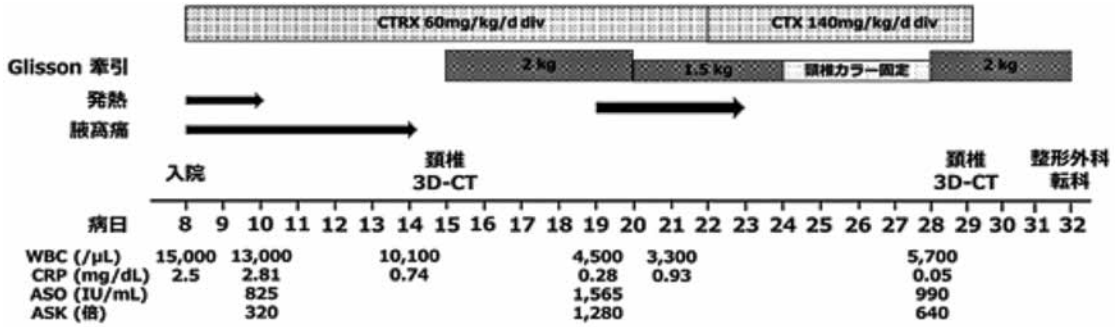
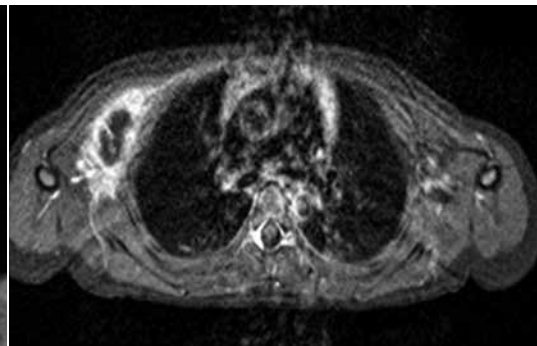
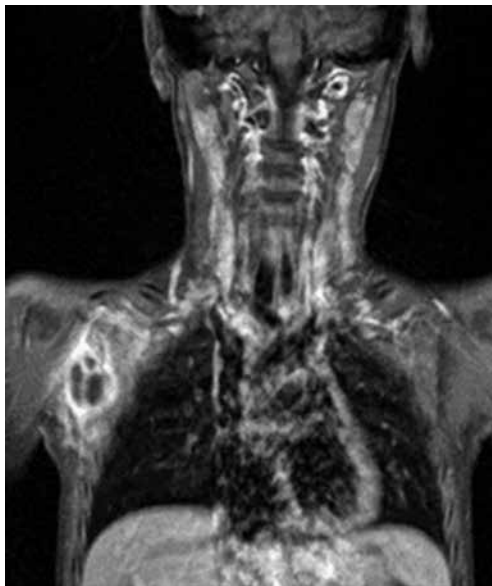


図1 入院後経過

CTRX : Ceftriaxone, CTX : Cefotaxime

ASO : 抗ストレプトリジン-O 抗体, ASK : 抗ストレプトキナーゼ抗体



a | b

図2 入院時胸部造影 MRI

右腋窩の皮下に約4cmの不整形腫瘤を認め、造影MRIでは辺縁優位に造影効果が認められ、内部に造影不良域を伴う。頸部への炎症の波及は認めない。

a. 冠状断面, b. 体軸断面

の判断で、膿瘍の改善を待って再診の方針となった。入院翌日（第9病日）の超音波所見では右腋窩から前胸部にかけて形状不整な不均一領域を認めた。皮膚科・小児外科に対診したが局所麻酔下での穿刺排膿は困難であり、抗菌薬治療を継続して、治療への反応をみる方針とした。入院時には痛みにより右肩関節屈曲は不可能であったが、第11病日には解熱を認め右肩関節屈曲90°まで可能となり改善傾向を認めた。第14病日の腋窩超音波検査で病変の縮小を認め、右肩関節の屈曲は160°、血液検査でもWBC 10,100/ μL 、CRP 0.74 mg/dLと改善を認めた。第19病日に39.1℃の発

熱を認めたため、血液検査を施行したところWBC 4,500/ μL 、CRP 0.28 mg/dLと炎症反応の悪化なく、全身状態は良好であり腋窩の所見も悪化を認めなかったため経過観察とした。第20病日夜間に腹痛の訴えがあり、第21病日に腹部超音波検査を実施したところ、胆嚢に高輝度エコーと胆泥が認められたが胆嚢炎は否定的であった。CTRXによる偽胆石症を考えCTRXを中止し、Cefotaxime (CTX) 140mg/kg/dayに変更、ウルソデオキシコール酸内服を開始した。その後は追加治療を必要とせず、第23病日に解熱した。第28病日の腋窩超音波検査で膿瘍消失を確認し、抗



図3 頸椎 X線写真

環椎後弓に重なりがなく(矢印)回旋が疑われるが、明らかな脱臼は指摘できない。

菌薬は計3週間投与し終了とした。胆嚢の高輝度エコーは、第38病日(CTRX中止から19日目)の腹部超音波検査で消失を確認した。

膿瘍縮小傾向がみられた後も斜頸が残存していたため第15病日に頸椎CT(図4)を施行したところ、環椎が軸椎に対して亜脱臼位となっていた。環軸椎回旋位固定の診断でGlisson牽引(2kg)を開始した。第20病日に斜頸の改善が認められ、

Glisson牽引を1.5kgに減量した。第24病日にさらに斜頸の改善が認められたためGlisson牽引を一旦終了し、頸椎カラー固定に変更した。しかし、斜頸が完全に整復されない状況が続いたため全身麻酔下での整復固定も考慮しつつ、第28病日Glisson牽引を再開した。第29病日に斜頸の大幅な改善が認められ、頸椎CTでも整復が確認された。整復後もGlisson牽引継続が必要と判断され、第32病日に整形外科転科となり、2週間Glisson牽引を継続し、頸椎カラー固定で退院となった。退院後12週で頸椎カラーを完全に終了とし、その後再発は認めていない。

II. 考 察

本症例は腋窩リンパ節膿瘍を契機に発症したAARFの小児例である。リンパ節炎は小児に多くみられる病態ではあるが、顎下リンパ節や頸部リンパ節に比較して腋窩リンパ節が病変となることは少ない²⁾。小児に特徴的な腋窩リンパ節炎としてBCG接種に伴ったものがあげられるが、そのほかの病原体による腋窩リンパ節膿瘍はまれである。化膿性リンパ節炎の起因菌として*Streptococcus pyogenes*や*Staphylococcus aureus*によるものが一般的だが、ここ40年の間に*S. aureus*が*S. pyogenes*に取って代わってきている²⁾。またOhnishiらは、12歳男児の*Staphylococcus argenteus*による鼠径リンパ節炎から膿瘍を形成した1

a | b | c

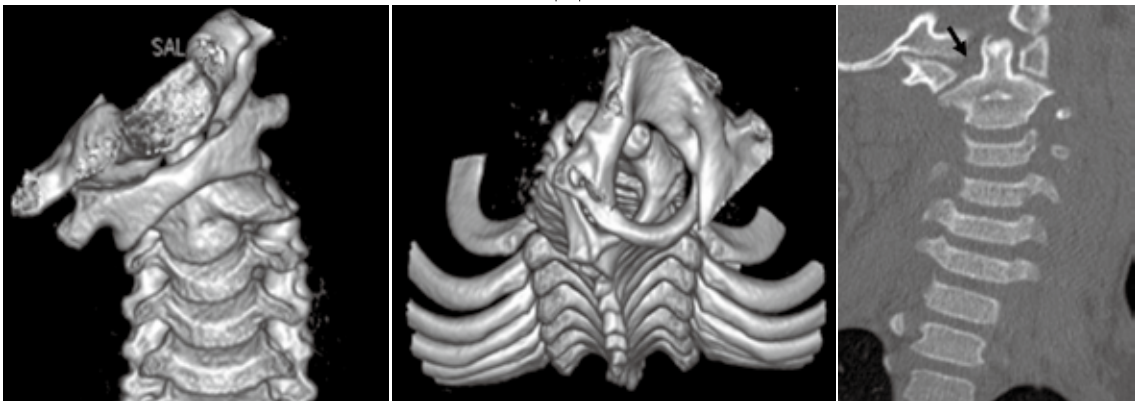


図4 頸椎CT

第15病日：環軸椎関節の亜脱臼が認められる。

a. 3D-CT, b. 3D-CT, c. 前額断面；歯突起側面と環椎内側縁の距離に左右差を認める(矢印)。

例を報告しており、患児は鼠経リンパ節炎発症の2か月前にも右腋窩リンパ節膿瘍のエピソードがあり *S. argenteus* が起因菌であった可能性が考察されている³⁾。Boyce は *S. pyogenes* による成人腋窩リンパ節炎4例を報告し、1例で膿瘍形成を認め、2例は発症前に手指に軽微な外傷のエピソードを認めていた⁴⁾。成人 HIV 陽性患者で、傷のある手で猫の世話をしたことを契機に *Corynebacterium ulcerans* による腋窩リンパ節膿瘍をきたした症例も報告されている⁵⁾。本症例も腋窩リンパ節膿瘍患側の右手指に擦過創を認めており、侵入門戸であった可能性がある。本症例は咽頭培養と血液培養で有意な病原体の発育は認めず、膿瘍からの検体採取も行えなかったため起因菌の同定は行えなかった。しかし、ASO が第19病日に1,500 IU/mL と基準値を大きく超えて高値であったことから病原体として溶血性レンサ球菌の関与が強く疑われ、血清抗体価が起因菌の推定に有用であった。ASO は A 群以外にも C 群、G 群でも高値となり得るが、化膿性感染症の病原体としては A 群が最も多い。リンパ節腫脹をきたす疾患として猫ひっかき病、結核、Epstein-Barr ウイルス感染症、サイトメガロウイルス感染症、トキソプラズマ感染症等が鑑別としてあげられるが、いずれも各種検査からは否定的であった。また、患児にこれまで免疫不全症を疑わせるようなエピソードは認めず、免疫グロブリンや好中球殺菌能・貪食能に異常は認めなかった。

治療に関して、CTR の Methicillin-susceptible *S. aureus* 菌血症に対する review では、骨関節感染症、外来患者など限られた状況では選択肢になり得るかもしれないが、現時点ではデータ不十分であり推奨されていない⁶⁾。これまでの報告では Cefazolin や Nafcillin が初期抗菌薬として選択されており⁴⁾、初期抗菌薬としては *S. aureus* に十分な活性を持った抗菌薬がより望ましかったと思われる。また、本症例は病原菌の同定が行えなかったことから de-escalation は行えず、臨床経過が良好であったこと、ASO 高値から溶血性レンサ球菌の可能性が高いと経過中に考えられたことから CTR と CTX で治療を完遂した。本症例の右腋窩リンパ節膿瘍は大胸筋の深部に位置し、局

所麻酔下では排膿を安全に行えないと判断し、抗菌薬治療の効果をみながら治療を行った。膿瘍径が大きく抗菌薬単独治療への効果が期待しにくい、あるいは抗菌薬治療開始後効果が乏しいといった場合には、全身麻酔下での排膿を考慮する必要があると考えられる。また、当院受診前に抗菌薬が1日分処方されており培養結果に影響を与えた可能性があり、抗菌薬適正使用の重要性も示唆された。

Fielding は AARF を病態から4つに分類し⁷⁾、本症例は環椎の前方偏位を認めず、歯突起、横靭帯、翼状靭帯は正常であり、最も多い type I であった。頸部リンパ節炎や川崎病などの頸部の炎症では、環軸椎の靭帯、特に横靭帯に波及しやすく、充血や浮腫、壊死などによる靭帯の機能障害や、波及した炎症による筋攣縮などにより特に AARF を合併しやすい⁸⁾。しかし、AARF は直接頸部への炎症の波及がなくとも起こる可能性はあり、睡眠中の体位に関連したものが最も多かったという報告もあり姿勢は重要な要素である⁹⁾。本症例は画像上頸部への炎症の波及は認めず、右腋窩を庇う姿勢を長時間とっていたことが誘因と推測された。

後天性斜頸を認めた場合には AARF を念頭においた迅速な対応が必要である。なぜなら AARF は、発症から治療開始までの期間が予後に関係しているためである⁹⁾。Roche らの報告によると発症後1週間未満の症例は頸椎カラー固定のみで回復するが、それ以上は牽引が必要となり、とくに発症から3か月以上経過した症例では、観血的治療を要することが多い¹⁰⁾。頸椎 X 線写真と 3D-CT 両者を比較した検討では、回旋の有無の評価は頸椎 X 線写真が11名中3名で可能であったのに対し 3D-CT は全例で可能であり、3D-CT の有用性が報告されている¹¹⁾。本症例でも入院時の頸椎 X 線写真では AARF の正確な評価が行えていなかった。早期診断のために 3D-CT を考慮し、早期治療に繋げるべきであったと考えられる。井上ら¹²⁾ の AARF 23 例の初診科を検討した報告では、小児科 11 例 (48%)、整形外科 10 例 (43%) と整形外科とともに小児科を初診した患者も多かった。一方で AARF と診断されたのは小児科 11 例中 2 例

であり、小児科医の間でも AARF の病態を広く周知し、早期診断と治療を行っていく必要がある。

論文投稿について、御家族から同意を得ています。

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

診療と論文作成に協力戴いた当院整形外科矢吹明子先生に、この場を借りて深謝申し上げます。

本論文の要旨は、第 48 回小児感染症学会総会・学術集会 (2016 年 11 月, 岡山) においてポスター発表した。

文 献

- 1) 小西祥平, 他: 頸部リンパ節腫大に環軸椎回旋位固定を合併した 3 症例. 日本小児科学会雑誌 111 : 1191-1195, 2007
- 2) Pasternack MS, et al : Lymphadenitis and Lymphangitis. Mandell, Douglas, and Bennett's Principles and Practice of Infectious Diseases. 8th ed. (Bennett JE, et al). Churchill Livingston, Philadelphia, 2015, 1226-1237.
- 3) Ohnishi T, et al : Purulent lymphadenitis caused by *Staphylococcus argenteus*, representing the first Japanese case of *Staphylococcus argenteus* (multilocus sequence type 2250) infection in a 12-year-old boy. J Infect Chemother 24 : 925-927, 2018
- 4) Boyce JM : Severe streptococcal axillary lymphadenitis. N Engl J Med 323 : 655-658, 1990
- 5) Yoshimura Y, et al : A case report and epidemiological investigation of axillary lymph node abscess caused by *Corynebacterium ulcerans* in an HIV-1-positive patient. Epidemiol Infect 142 : 1541-1544, 2014
- 6) Lothar SA, et al : Once-Daily Treatments for Methicillin-Susceptible *Staphylococcus aureus* Bacteremia: Are They Good Enough? Curr Infect Dis Rep 19 : 43, 2017
- 7) Fielding JW, et al : Atlanto-Axial Rotatory Fixation. J Bone Joint Surg Am 59 : 37-44, 1977
- 8) 伊藤 隆, 他 : Atlanto-axial rotatory fixation 55 例の検討. 骨・関節・靭帯 18 : 43-50, 2005
- 9) Yamada K, et al : Epidemiology and conservative treatment for pediatric atlantoaxial rotatory fixation. J Spine Res 6 : 1347-1353, 2015
- 10) Roche CJ, et al : A pictorial review of atlanto-axial rotatory fixation: Key points for the radiologist. Clin Radiol 56 : 947-958, 2001
- 11) 大楠郁子, 他 : 環軸椎回旋位固定における 3D-CT の有用性. 医療 59 : 159-163, 2005
- 12) 井上三四郎, 他 : 環軸椎回旋位固定の患児はどのようにして診断されているのか?. 整形外科と災害外科 62 : 710-712, 2013

Concomitant atlantoaxial rotatory fixation from right axillary lymph node abscess

Kenichiro TAKAHASHI¹⁾, Yuri TAKAHASHI¹⁾, Yoko SHIDA¹⁾, Nahoko YASUDA¹⁾,
Yoko SUZUKI^{1,2)}, Shigetaka SUGIHARA¹⁾

- 1) *Departments of Pediatrics, Tokyo Women's Medical University Medical Center East*
- 2) *Department of Health and Nutrition, Wayo Women's University*

A 7-year-old previously healthy girl was hospitalized with fever, axillary pain, and torticollis on the eighth day of illness. The illness was diagnosed as a right axillary lymph node abscess with enhanced magnetic resonance imaging. Regarding torticollis, no apparent dislocation was detected. The abscess was difficult to puncture and ceftriaxone treatment was initiated, leading to defervescence of the fever after a few days. The abscess gradually reduced in size. The patient was treated with antibiotics for 3 weeks and the abscess resolved. However, torticollis persisted, and cervical computed tomography (CT) was performed on the 15th day of illness. After diagnosis of atlantoaxial rotatory fixation (AARF), Glisson traction was initiated. On the 29th day of illness, torticollis improved according to cervical CT. No pathogens were observed in the culture, but an anti-streptolysin O (ASO) level of >1,500 IU/mL was considered to be markedly high, and *Streptococcus pyogenes* was presumed to be the causative pathogen (19th day of illness). This case demonstrates the usefulness of serum antibody titer in cases where puncture is difficult, such as axillary lymph node abscess, and the importance to diagnose AARF and to start treatment promptly.

Key words: axillary lymph node abscess, atlantoaxial rotatory fixation, *Streptococcus pyogenes*

(受付：2019年12月10日，受理：2020年3月5日)

* * *