

症例報告

股関節拘縮が2か月間残存した 長内転筋化膿性筋炎の一小児例

佐藤大記¹⁾ 小澤恭子¹⁾ 浅田洋司¹⁾

要旨 化膿性筋炎は熱帯地方に多い細菌感染症であるが、本邦はじめ温帯地域での報告も増加傾向である。これまでに化膿性筋炎後の関節拘縮についての報告例はほとんどない。右長内転筋化膿性筋炎に罹患し、約2か月間にわたって股関節拘縮を呈した症例を経験した。症例は3歳男児、右下肢痛・跛行を呈し発熱を伴ったため入院した。造影MRI所見より長内転筋化膿性筋炎と診断し、切開排膿を行い、抗菌薬加療を行った。膿汁からはメチシリン感受性黄色ブドウ球菌を同定した。入院33日目に退院し、抗菌薬は退院12日目に終了した。退院後右股関節拘縮の残存と疼痛の増悪を認め、運動療法を行った。退院37日目には関節拘縮所見は消失し、退院54日目に疼痛を訴えなくなった。化膿性筋炎は関節拘縮と疼痛が比較的長期間残存する例が存在するため、運動療法など整形外科的な介入を検討すべきである。

はじめに

化膿性筋炎は熱帯地域に多い細菌感染症であるが、本邦はじめ温帯地域での報告も増加傾向である。好発年齢には小児と成人の二峰性があり、免疫学的異常のない小児にも発症し得る¹⁾。

関節拘縮とは、筋や皮膚など関節周囲軟部組織の器質的変化を原因とした関節可動域の制限を指す。これまでに化膿性筋炎後の関節拘縮に関する報告例はほとんどない。今回われわれは外傷を契機に発症し、膿瘍を形成後約2か月間にわたって股関節拘縮が残存し、運動療法を要した症例を経験したため報告する。

I. 症 例

症例：3歳、男児

主訴：発熱、右鼠径部痛

周産期歴：在胎24週2日、体重657gで出生。慢性肺疾患、動脈管開存症、両側鼠径ヘルニアに対し人工呼吸器管理、インドメタシン投与、ヘルニア根治術を施行された。

既往歴・家族歴・生活歴：特記事項なし。

予防接種歴：13価肺炎球菌ワクチン4回、Hibワクチン4回、他定期接種のワクチンは接種済み。

現病歴：入院40日以上前に転倒し、両膝に出血を伴う擦過傷を負った。入院39日前、右足の付け根に疼痛と発赤を認めたが翌日には軽快した。入院8日前に再度右鼠径部の痛みを訴え、入院4日前には歩行時に右足を引きずるようになった。入院3日前に近医小児科で咽頭A群β溶連菌迅速抗原検査を施行され陰性であった。セフトロピドキシルを処方された。入院2日前から体温38.6°Cの発熱が出現した。入院当日、発熱、右鼠径部痛が持続していたため近医を再診した。精査

Key words：化膿性筋炎、筋膿瘍、長内転筋、関節拘縮、運動療法

1) 仙台赤十字病院小児科

連絡先：佐藤大記 〒982-8501 仙台市太白区八木山本町2丁目43-3 仙台赤十字病院小児科

表 主要検査成績

血算		培養検査	
WBC	13,630 / μ L		
Stab	7.0 %	膿汁	
Seg	63.0 %	検出菌 1	<i>Staphylococcus aureus</i>
Eos	1.0 %	薬剤名	MIC (μ g/mL)
Mono	9.0 %	ABPC	≤ 0.12 S
Lym	20.0 %	CEZ	≤ 0.5 S
RBC	441×10^4 / μ L	CLDM	≤ 0.25 S
Hb	12.1 g/dL	CTRX	4 S
Ht	35.8 %	FOM	≤ 32 S
Plt	33.0×10^4 / μ L	LVFX	≤ 1 S
		MPIPC	≤ 0.25 S
		VCM	1 S
		(disk zone-edge test は未実施)	
		検出菌 2	<i>Staphylococcus epidermidis</i>
		薬剤名	MIC (μ g/mL)
		ABPC	>8 R
		CEZ	>16 R
		CLDM	≤ 0.25 S
		CTRX	>32 R
		FOM	≤ 32 S
		LVFX	2 I
		MPIPC	2 R
		VCM	1 S
		血液	
			2セットとも陰性
T.Bil	0.3 mg/dL		
AST	21 IU/L		
ALT	9 IU/L		
LDH	354 IU/L		
ALP	257 IU/L		
GGT	10 IU/L		
TP	6.7 g/dL		
Alb	3.7 g/dL		
CK	44 IU/L		
Na	139 mEq/L		
K	4.0 mEq/L		
Cl	101 mEq/L		
Ca	8.9 mg/dL		
BUN	9.6 mg/dL		
Cr	0.25 mg/dL		
CRP	2.8 mg/dL		
PCT	0.06 ng/mL		
ASO	<8 倍		

MIC : minimum inhibitory concentration

加療目的に同日当科に紹介入院した。

入院時現症：身長 94.1 cm, 体重 15.0 kg, 体温 37.7°C, 脈拍数 126 回/分, 呼吸数 36 回/分, SpO₂ 97% (室内気), 独歩可能で, 歩容の明らかな異常, 跛行は認めなかった。右鼠径部に腫大したリンパ節を 2 個触知した。両側下腿前面の皮膚に打撲痕を認めた。仰臥位で右股関節・膝関節は屈曲位であり, 右大腿近位部の熱感, 腫脹はなく, 診察を拒否する様子から同部位の圧痛が疑われた。股関節・膝関節の他動運動での疼痛誘発なし。右股関節の屈曲・内旋・外旋制限を認めた。

主要検査成績：白血球数 13,630/ μ L, CRP 2.8 mg/dL と炎症反応の上昇を認めた。CK は上昇を認めなかった (表)。右鼠径部超音波検査では, 1.0 ~ 2.2 cm の腫大したリンパ節を 2 カ所に認めた。入院 2 日目の股関節 MRI (図 1) で右長内転筋の T2 強調画像で高信号を認め, 同部位の造影後 T1 脂肪抑制画像でも一部造影不良域を伴う筋組織の造影効果を認めた。短内転筋, 薄筋, 大内転筋の一部にも造影効果を認めた。MRI 上関節炎, 骨髓炎を疑う所見を認めなかった。

入院後経過：ベッド上安静としてセファゾリン

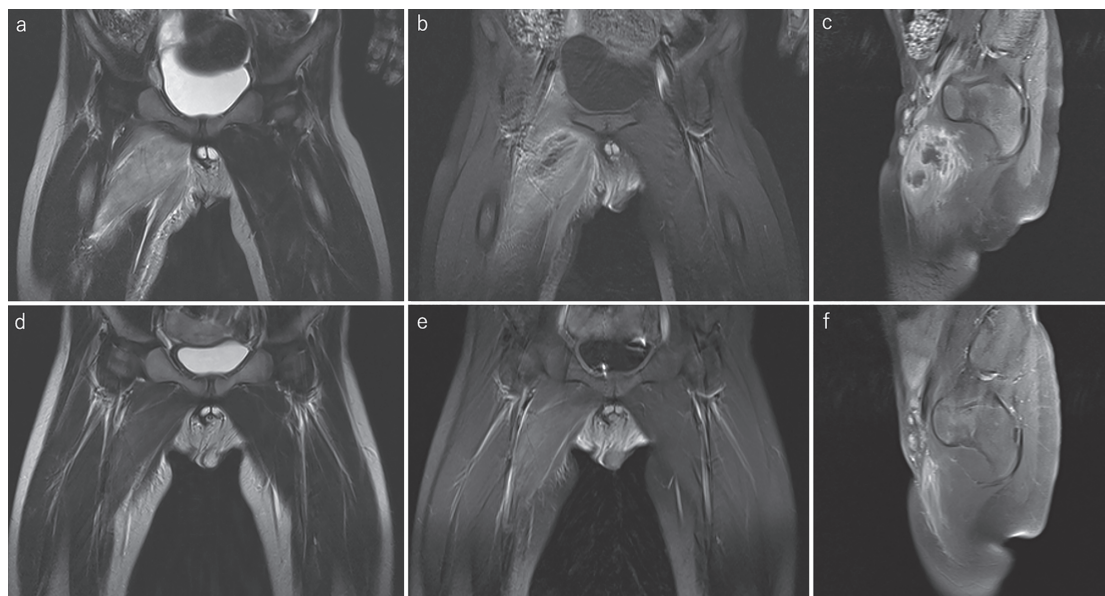


図1 股関節 MRI 画像

a. 入院2日目 T2強調 (単純), b・c. 入院2日目 T1 脂肪抑制 (造影), d. 入院24日目 T2強調 (単純), e・f. 入院24日目 T1 脂肪抑制 (造影)

(CEZ, 100mg/kg/日) の静脈内投与を開始した。入院2日目のMRI所見より右長内転筋の化膿性筋炎と診断し、切開排膿術を施行し黄白色調の膿汁を培養に提出した。膿汁の塗抹グラム染色は菌体・白血球とも陰性であった。同日CEZを150mg/kg/日に増量した。解熱が得られず入院3日目から抗菌薬をバンコマイシン (VCM, 60mg/kg/日) に変更し、以降トラフ値を参考に管理を行った。入院4日目から解熱傾向と、炎症反応の改善傾向を認めた (図2)。膿培養の中間報告で methicillin-sensitive *Staphylococcus aureus* (MSSA) およびその他のブドウ球菌属が検出されたため、CEZ (150mg/kg/日) を再開し、VCM (80mg/kg/日) と併用した。入院7日目に膿培養の最終報告がなされ、MSSA および methicillin-resistant *Staphylococcus epidermidis* (MRSE) が検出された。入院後提出した血液培養2セットからは菌は検出されなかった。MRSEが起病菌の可能性は低いと判断し、同日よりCEZ単独での治療を継続した。入院7日目以降有意な発熱を認めず、血液検査上の炎症反応も改善傾向を示した。入院24日目の大腿造影MRI (図1) で高信号域の

縮小と膿瘍の消失を確認し、入院31日目に抗菌薬をセファレキシン 100mg/kg/日の内服に切り替えた。同日点滴を終了し安静を解除したところ、ときおり右下肢の疼痛を訴えるようになった。疼痛時の冷却と安静を指示し、入院33日目に退院とした。

退院後より走って階段を昇降する際、ズボンを脱ぐ際などの右大腿の疼痛が徐々に出現した。退院5日目 (入院日から38日後) の整形外科診察時には右股関節の外転・外旋制限を認め、化膿性筋炎に起因する右股関節拘縮の残存として運動療法 (1日4回の他動関節可動域運動) と冷却を家族に指導した。退院12日目にセファレキシンを終了した。徐々に疼痛は軽快し、退院20日目には保育園登園を許可した。右股関節の外旋制限は退院33日目までは残存し、以降消失した。退院37日目に右下肢痛、跛行、体温37.5°Cの発熱を認め受診した。診察上他覚的異常所見を認めず、大腿部・股関節超音波所見に特記所見なく、血液検査上も白血球数10,950/ μ L, CRP 0mg/dLと炎症反応の上昇を認めなかったため、化膿性筋炎の再燃は否定的と考えられた。運動の制限を指示し3日

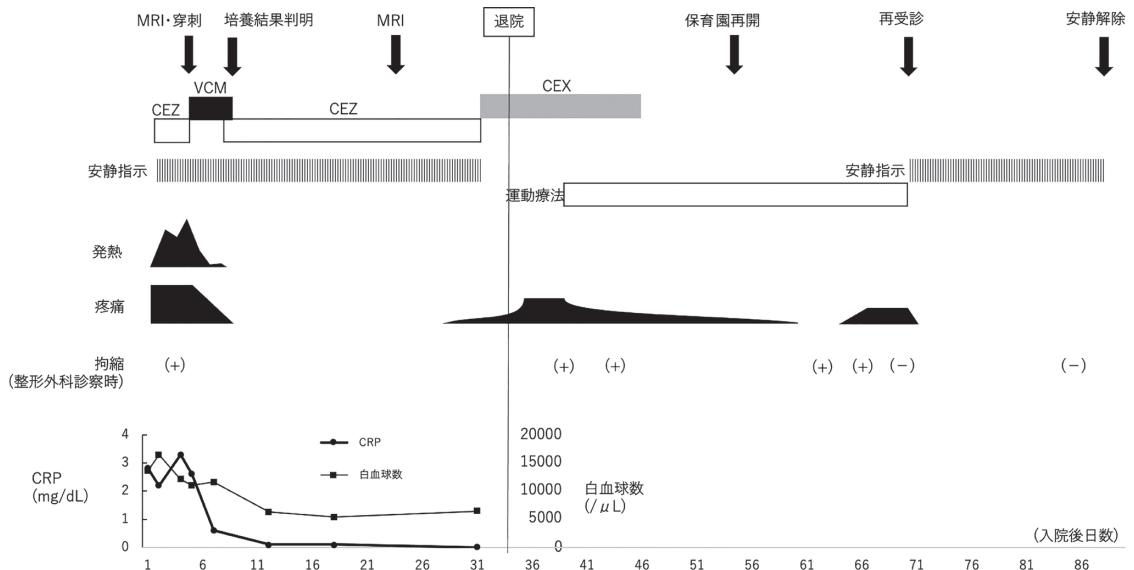


図2 臨床経過

CEZ : cefazolin, VCM : vancomycin, CEX : cefalexin

後には解熱が得られ、疼痛跛行も改善を認めた。退院 51 日目に安静指示を解除し、退院 54 日目には疼痛を訴えることはなくなった。退院 100 日目まで外来経過観察を継続しているが再燃は認めていない。

II. 考 察

小児の化膿性筋炎は国内でも報告が散見されるが、長期的な療養を要した股関節拘縮の合併に関する報告は渉猟し得た限りみられない。海外では Zadroga らが肺炎球菌による化膿性筋炎 35 例のうち 1 例に関節拘縮の後遺症を認めたと報告しているのみである²⁾。本症例では、初診時に認めた股関節拘縮が約 2 か月間持続し、家族による運動療法と安静を要した点が既報とは異なる。

化膿性筋炎は主に下肢の大きな筋肉に好発し、大腿四頭筋 (26.3%)、腸腰筋 (14%)、臀筋群 (10.8%) の順に多く、この 3 カ所で好発部位の 50% 以上を占める¹⁾。内転筋群を主座とする症例は 2.8% と比較的まれで、なかでも長内転筋を主座とするものは本邦では成人を含め 2 例の報告がみられる^{3,4)}。長内転筋は、短内転筋、大内転筋、恥骨筋、薄筋とともに内転筋群を構成し、股関節

の内転・屈曲・外旋に関与する。本症例では、初診時より股関節の可動域制限を認め、退院後も持続していた。また、安静を解除した入院 31 日目頃より下肢痛を訴え、退院後の安静度拡大により疼痛が増悪する可能性があった。このため患者家族には整形外科医より自宅での運動療法を指導し、入院から 70 日後には回旋制限が、入院から 87 日後には疼痛の訴えがなくなった。化膿性筋炎の関節拘縮に対し運動療法を行った報告は過去にみられないが、成人の股関節可動域制限や疼痛の緩和に豊富なエビデンスのある介入方法であり⁵⁾、本症例においても疼痛・可動域制限の緩和に一定の効果があったと考える。本症例の関節拘縮が長期にわたって持続した理由は不明であるが、入院までに 39 日間の軽微な症状の期間 (浸潤期) を認めており、この期間の長さが筋肉への炎症の波及を強めた可能性がある。拘縮の原因となる長期間の安静や鎮静による不動は経過中認めず、退院前 MRI でも関節での炎症所見は認めなかった。退院時にみられた筋炎所見の残存は、化膿性筋炎で広く報告されており、このことが本症例の非典型的な経過に影響しているとは考えにくい。

化膿性筋炎は筋肉を主座とする亜急性の細菌感

染症で、連続した組織からの炎症の波及や穿通性外傷を原因としないものである。日常的な運動や外傷による筋肉の傷害を背景に、一過性菌血症や腹腔内感染症が原因で起こると考えられている⁶⁾。本症例では、発症前に転倒のエピソードがあり、初診時にも打撲痕が残るほどであったため関連を疑う。微熱や筋痛を1～3週間ほど呈する1期（浸潤期）、10～21日ほどかけて発熱、悪寒や膿瘍形成をきたす2期（化膿期）、敗血症や多発性膿瘍、多臓器不全をきたす3期（後期）に分けられる。1期での診断の困難さから90%の症例が2期で診断される。本症例も2期の症状で診断されている。入院39日前、8日前以降のエピソードは1期の症状であったことが強く疑われるが、この時点では受診もしておらず、たとえ受診したとしても診断に至るのは容易でないと考えられる。患者が小児であることは診断が遅れる要因となる¹⁾。今回検出された黄色ブドウ球菌は化膿性筋炎の起因菌の75%程度と最も多く、A群レンサ球菌、大腸菌などが続く。適切な治療が実施されれば致死率は1～4%程度とされており、再発もまれである⁷⁾。

本症例では、入院3日目に抗菌薬をVCMへ切り替えた。Methicillin-Resistant *Staphylococcus aureus* (MRSA) を治療対象とした理由としては、解熱傾向が得られなかったこと、膿の細菌培養検体が提出できたため起因菌が特定可能と期待されたことがあげられた。米国感染症学会のガイドライン⁸⁾では、初期治療の標的としてMRSAを含む黄色ブドウ球菌をあげている。米国と本邦ではMRSAの流行状況が異なるが、本邦でも外来患者の10～30%でMRSAが分離されること⁹⁾、強毒性であるPanton-Valentine leukocidin産生株の増加傾向があること¹⁰⁾などが知られている。MRSAを想定するかどうかについては、上記の点や患者の全身状態なども踏まえて個別の判断が必要と考えられる。

おわりに

外傷後に発症し膿瘍形成をきたした長内転筋化膿性筋炎の小児例を経験した。本症例のように、股関節拘縮と疼痛が比較的長期間残存する例が存在するため、運動療法など整形外科的な介入を検討すべきである。

本症例報告の投稿にあたり、患者の保護者に書面で同意を得た。

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

本症例の診療にご助言・ご協力を頂いた当院整形外科の北純先生、小児外科の伊勢一哉先生、岡村敦先生、宮城県立こども病院リウマチ感染症科の桜井博毅先生に深謝いたします。

文 献

- 1) Comegna L, et al : Pyomyositis is not only a tropical pathology : a case series. J Med Case Rep 10 : 372, 2016
- 2) Zadroga R, et al : Pneumococcal Pyomyositis : Report of 2 Cases and Review of the Literature. Clin Infect Dis 55 : e12-17, 2012
- 3) 上島洋二, 他 : 保存的治療で治癒した両側化膿性閉鎖筋・内転筋筋炎, 恥坐骨骨髄炎の1例. 小児感染免疫 25 : 169-173, 2013
- 4) 末次麻里子, 他 : 恥骨骨髄炎と内転筋群および腹直筋ガス産生膿瘍を合併した2型糖尿病の1例. 糖尿病 52 : 117-122, 2009
- 5) 日本整形外科学会診療ガイドライン委員会, 他 : 変形性股関節症に対する運動療法の効果は, 変形性股関節症診療ガイドライン2016 (改訂第2版) (日本整形外科学会, 他編). 南江堂, 東京, 2016, 103-106
- 6) Bretón J, et al : Pneumococcal pyomyositis. Pediatr Infect Dis J 20 : 85-87, 2001
- 7) Long S, et al : Myositis, pyomyositis, and necrotizing fasciitis. Principles and Practice of Pediatric Infectious Disease, 4th (Long S, et al, eds). Elsevier, Amsterdam, 2012, 462-468
- 8) Stevens DL, et al : Practice Guidelines for the Diagnosis and Management of Skin and Soft Tissue Infections : 2014 Update by the Infectious Diseases Society of America. Clin Infect Dis 59 : e10-52, 2014
- 9) Yanagihara K, et al : Antimicrobial susceptibility and molecular characteristics of 857 methicillin-resistant *Staphylococcus aureus* isolates from 16 medical centers in Japan (2008-2009) : nationwide survey of community-acquired and nosocomial

- MRSA. *Diagn Microbiol Infect Dis* 72 : 253-257, 2012
- 10) Uehara Y, et al : Molecular epidemiologic study of community-associated methicillin-resistant *Staphylococcus aureus* with Panton-Valentine leukocidin gene among family members in Japan. *J Infect Chemother* 21 : 700-702, 2015

A case of purulent infectious myositis of the long adductor muscle with concomitant hip contracture lasting for 2 months in a 3-year-old boy

Taiki SATOU¹⁾, Kyoko OZAWA¹⁾, Hiroshi ASADA¹⁾

1) *Department of Pediatrics, Sendai Red Cross Hospital*

Purulent infectious myositis (PIM) is a bacterial disease that is relatively common in tropical regions but is also being increasingly reported in temperate regions, including Japan. There have been very few reports regarding joint contractures following PIM till date. Herein, we report a case of a hip contracture after PIM of the right long adductor muscle. A febrile 3-year-old boy was admitted to the hospital due to pain and limpness of his right leg. Contrast-enhanced hip joint magnetic resonance imaging findings revealed PIM of the right long adductor muscle with abscess formation. Incision and drainage were performed, antibiotic therapy was started, and methicillin-sensitive *Staphylococcus aureus* was later detected in the pus on culture. He was discharged on the 33rd day of hospitalization and continued antibiotic therapy until the 12th day after discharge from the hospital. After discharge, the patient's right hip pain recurred, and the orthopedic surgeon confirmed residual hip contracture on examination. Hip joint rehabilitation was then suggested by the orthopedic surgeon and was performed by the patient's guardians. By the 37th day after discharge from the hospital, the patient had recovered from the hip contracture, and his pain was completely relieved by the 54th day. As observed in our case, PIM can cause joint contracture and pain for a prolonged period; hence, orthopedic interventions, such as rehabilitation, should be considered for its management.

Key words : purulent infectious myositis, muscle abscess, long adductor muscle, joint contracture, exercise therapy

(受付 : 2021 年 5 月 28 日, 受理 : 2021 年 10 月 28 日, 受付 No. 978)

* * *