

症 例

糞線虫による胸膜炎が疑われた HTLV-I キャリアの 1 例

大谷 秀雄¹⁾ 森 進一郎¹⁾ 土橋 美子¹⁾ 黒野明日嗣²⁾
 溝口 亮³⁾ 川畑 政治³⁾ 有村 公良³⁾ 納 光弘³⁾

要旨：糞線虫による胸膜炎が疑われた human T-lymphotropic virus type I (HTLV-I) キャリアの一例を報告した。症例は 73 歳，女性。呼吸困難，発熱，全身浮腫にて発症した。入院時の検査所見で両側胸水，心拡大，頻拍性心房細動と左室機能低下及び右心系負荷所見が認められたため，心不全として治療を開始した。治療後，浮腫と呼吸困難は改善を認めたが，胸水貯溜は遷延した。胸水の原因確定のため行った左胸腔穿刺の所見は，滲出性胸水の所見を呈し，穿刺液よりラブジチス型の糞線虫が検出された。thiabendazole(1500 mg/日，3 日間)を 2 クール投与後，胸水は著明に改善した。本症例は，免疫不全をきたす基礎疾患は有していなかったが，血清抗 HTLV-I 抗体が陽性であった。HTLV-I 高浸透地区においては，胸水貯溜の鑑別として糞線虫による胸膜炎も考慮が必要と考えられた。

キーワード：糞線虫，胸膜炎，胸水貯溜，ヒト T リンパ球向性ウイルス I 型

Thiabendazole, Strongyloides stercoralis, Pleuritis, Pleural effusion, HTLV-I

緒 言

糞線虫症 (strongyloidiasis) は糞線虫 (strongyloides stercoralis) の寄生によって引き起される疾患である。糞線虫は主に高温・多湿の亜熱帯地方に多くみられるが，本邦では沖縄県や鹿児島県南部に多く分布している^{1,2)}。通常糞線虫症は，無症状に経過することが多く，また症状があっても多くは軽微な腹部症状を呈するのみである^{1,3)}。一方，本症は日和見感染症に属し，ヒト免疫不全ウイルス感染症等の感染防御能の低下した宿主においては過剰感染 (hyperinfection) と呼ばれる病態により極めて重篤な播種性糞線虫症が起りうる事が知られている^{1,4)-6)}。また最近，糞線虫保有者が高率に human T-lymphotropic virus type I (HTLV-I) 感染を伴っていることが報告され，両者の間には密接な関連があることが指摘されている^{7,8)}。

本寄生虫は腸管内寄生虫で，糞便から検出されることが多いが，播種性糞線虫症においては，全身の多彩な臓器から本寄生虫が検出されることが知られている。今回我々は，胸水より糞線虫が検出され，糞線虫による胸膜炎が疑われた稀な一例を経験したので報告する。

症 例

症例：73 歳，女性。

主訴：呼吸困難，発熱，浮腫。

家族歴：姉がリンパ腫にて死亡。

既往歴：67 歳 心房細動，70 歳 脳梗塞。

生活歴：海外旅行歴なし。

現病歴：1995 年 6 月下旬より呼吸困難，乾性咳嗽が出現したため近医を受診し治療を受けた。しかし，症状の改善がみられず，動悸と呼吸困難が増強し，次第に全身浮腫が出現してきたため，7 月 8 日に当科受診し，直ちに入院となった。

入院時現症：体温 37.4 C，血圧 110/66，脈拍 158/分で不整，呼吸数 32/分，顔面及び上下肢に浮腫を認めた。チアノーゼ及びバチ状指は認めず，また表在リンパ節は触知しなかった。呼吸音は両側下肺野で湿性ラ音を聴取した。入院時検査所見 (Table 1)：末梢血血液検査では白血球数は正常で，リンパ球，好酸球分画は正常であったが，血小板数は 5.3 万/mm³ と減少していた。CRP は 5.1 mg/dl と軽度の炎症所見を認めた。生化学検査では，GOT 152 KU/L，GPT 145 KU/L，LDH 1765 WU/L と上昇が認められた。各種肝炎ウイルス抗体は陰性であった。血清抗 HTLV-I 抗体が 8,192 倍と陽性であった。免疫学的検査では末梢血 CD 4+ 細胞 50.0%，CD 8+ 細胞 19.7%，CD 4/CD 8 比 2.54 であった。血清 IgE が 65 U/ml と低下していた。動脈血液ガス分析は過換気による PaCO₂ の低下，軽度の低酸素血症を認めた。

胸部 X 線写真と CT 所見 (Fig. 1)：胸部 X 線写真で

〒899 1611 鹿児島県阿久根市赤瀬川 4513

¹⁾阿久根市民病院呼吸器内科

²⁾同 神経内科

³⁾鹿児島大学医学部第 3 内科

(受付日平成 9 年 4 月 8 日)

Table 1 Laboratory findings on admission

CBC		Serology	
WBC	6,100 /mm ³	CRP	5.1 mg/dl
Neutro	77.0 %	RA	(-)
Eo	1.0 %	HBs Ag	(-)
Ly	19.0 %	HCV Ab	(-)
Mo	2.0 %	IgG	1221.0 mg/dl
RBC	529 × 10 ⁴ /mm ³	IgA	247.7 mg/dl
Hb	16.0 g/dl	IgM	112.7 mg/dl
Plat	5.3 × 10 ⁴ /mm ³	IgE	6.5 U/ml
Blood Chemistry		HTLV-I Ab	8,192 ×
TP	5.2 g/dl	T Cell	67.8 %
Alb	2.8 g/dl	B Cell	7.1 %
TB	1.9 mg/dl	CD4 + Cell	50.0 %
-GTP	64 mu/ml	CD8 + Cell	19.7 %
GOT	152 K-U	CD4/CD8	2.54
GPT	145 K-U	Blood Gas Analysis	
LDH	1,765 W-U	pH	7.459
Cr	3.6 mg/dl	PaCO ₂	25.0 mmHg
BUN	41.0 mg/dl	PaO ₂	74.4 mmHg
Na	141.0 mKq/l	Urine N.P.	
K	4.6 mKq/l	Stool N.P.	
Cl	101.0 mKq/l	Sputum culture normal flora	

Table 2 Laboratory analysis of pleural effusion

Protein	3.6 g/dl	Culture	(-)
LDH	416 W-U	Cytology	negative
ADA	3.1 IU/l	Strongyloides	(+)
CEA	0.6 ng/ml	stercoralis	
Cell Subpopulation			
Neutrophils	2.0 %		
Lymphocyte	73.0 %		
Histiocyte	24.0 %		

は心胸郭比増大，左側優位の両側胸水と左肺野に柵状影を認めた．胸部 CT では両側胸水と，心陰影に接した左肺野に柵状影を認めた．

心臓・血管系検査所見：心電図では頻拍性心房細動を，心臓超音波検査では，中等度の左室機能低下と右心系負荷所見を示していた．腹部エコーと腹部 CT 所見：第 11 病日に施行した腹部 CT では中等量の腹水と肝臓に数個の cyst を認めたが，萎縮像，辺縁の不整像や脾腫は認めなかった．第 14 病日に施行した腹部エコーでも腹水を認めたが，形態学的には肝硬変を示唆する所見は認めなかった．入院後経過：以上の所見より頻拍性心房細動及び急性心不全と診断し，酸素吸入とともに verapamil, furosemide, dopamine 等により心不全の治療を行った．治療開始後，心房細動は次第にコントロールされ，呼吸困難と浮腫も次第に改善したが，胸部 X 線写真上，胸水貯留は遷延した (Fig. 3). 胸水貯留の鑑別の目的で第 1 及び 7 病日に行った左胸腔穿刺の所見は Ta-

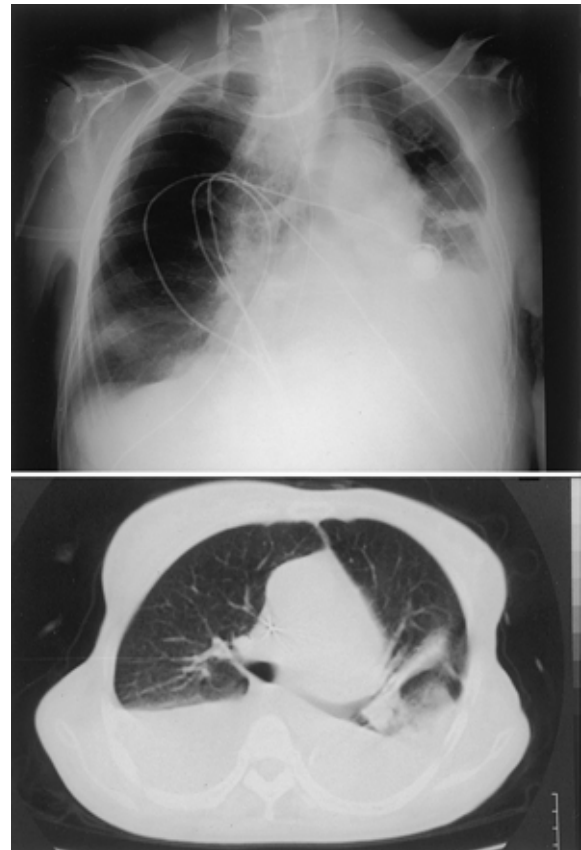


Fig. 1 Chest X-ray film (12 July, 1995) and chest CT scan (20 July, 1995) showing bilateral pleural effusions and abnormal shadows in the left lung fields.

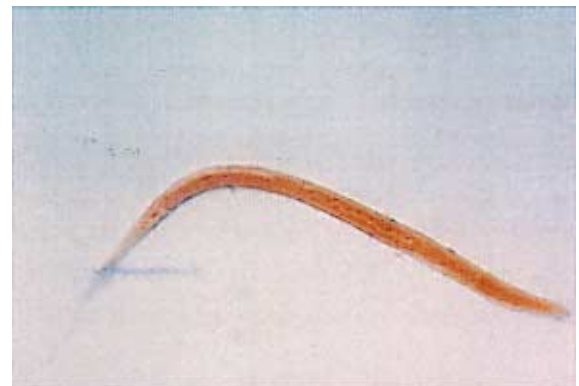


Fig. 2 Rhabditiform strongyloides stercoralis were detected in the pleural effusion by microscopy.

ble 2 に示したが，その性状に関する Light らの criteria⁹⁾，利尿剤投与中の胸水鑑別に関する Burgess らの報告¹⁰⁾等から滲出性胸水と判断した．一方，胸水の細菌培養，抗酸菌及び悪性細胞は陰性であったが，第 1 病日及び第 7 病日の二つの胸水から直接検鏡にて糞線虫が検出された (Fig. 2). 虫体は口腔が浅く，生殖原基が大きいこと，尾端に特徴的なくびれがないことよりラブジス

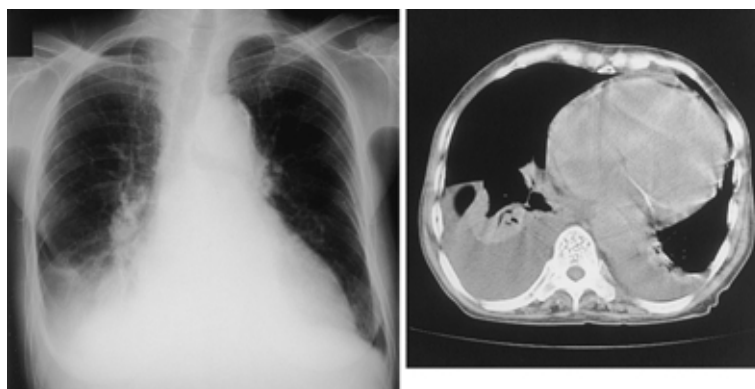


Fig. 3 Chest X-ray film and Chest CT scan on 16 October 1995 (13 days after two courses of thiabendazole).
The pleural effusion had slightly improved.



Fig. 4 Chest X-ray film on 8 September 1995 showing marked improvement of pleural effusion.

型幼虫の糞線虫と考えられた。遷延する胸水貯留が、糞線虫に伴う胸膜炎に起因する可能性も考えられたため、7月18日と8月1日に thiabendazole (1500 mg/日、3日間) を投与した。その後胸水は改善傾向を示し、9月8日の胸部X線写真 (Fig. 4) では胸水及び左肺野の索状陰影は消失していた。また、2クール治療後の8月24日に行った左胸水検査では糞線虫は検出されなかった。尚、入院時より認められた右側胸水については thiabendazole 2クール投与後の8月18日に胸水検査を施行した。治療により改善中の胸水であったが性状は漏出性胸水を呈し、糞線虫は検出されなかった。一方、本寄生虫が消化管内寄生虫であることから糞便検査 (直接塗沫法) を繰り返し行ったが虫卵及び虫体は検出されなかった。喀痰、腹水からは、糞線虫は検出されなかった。上記治療後、自覚症状は消失し、腹水も消失した。また、入院時に認められたトランスアミナーゼ値上昇、血小板

減少は心不全の改善と共に次第に改善し、第14病日には GOT 41 K-U, GPT 31 K-U, 血小板 $17.3 \times 10^4/\text{mm}^3$ に、第73病日には GOT 19 K-U, GPT 7 K-U, 血小板 $27.8 \times 10^4/\text{mm}^3$ と改善した。患者は9月27日に退院しその後外来通院しているが現在まで再発は見られていない。血清糞線虫抗体：第43病日 (8月19日) に採取した凍結血清を用いて測定した血清糞線虫抗体 (二重拡散法) は陰性であった。

考 察

本症例は急性の経過で呼吸困難、発熱、浮腫にて発症、入院時の検査所見から急性心不全と診断し治療を開始した。治療後臨床症状の改善を認めたものの胸水貯留は遷延した。原因確定のため採取した胸水より糞線虫が検出され、thiabendazole の全身投与を行ったところ胸水貯留は著明に改善した。本例の胸水貯留の原因については、入院時の種々の検査所見から一次的には心原性胸水の関与が考えられた。一方、遷延した胸水中の糞線虫の存在、胸水の性状が滲出性であったこと、thiabendazole 投与により胸水貯留が著明に改善したことなどから、遷延化した胸水については糞線虫により惹起された胸膜炎も関与したのと考えられた。しかしながら、胸水の性状を考えると、少なくとも左側胸水については糞線虫による胸膜炎が発症の一次的原因となった可能性も否定できないものと思われた。

糞線虫症は、土壤中の自由世代のフィラリア型幼虫が経皮感染し、静脈を経て肺に至り気道、食道、胃を経て十二指腸及び小腸上部に至り、そこで寄生世代の成虫となり虫卵を生む。通常これは腸内で孵化し、ラブジチス型幼虫となり便と共に体外へ排泄される。一方、本寄生虫には自家感染とよばれる特有の生活環があり、腸管内でラブジチス型幼虫から変化したフィラリア型幼虫が再び体内に侵入することが知られている¹⁾。この特異な感

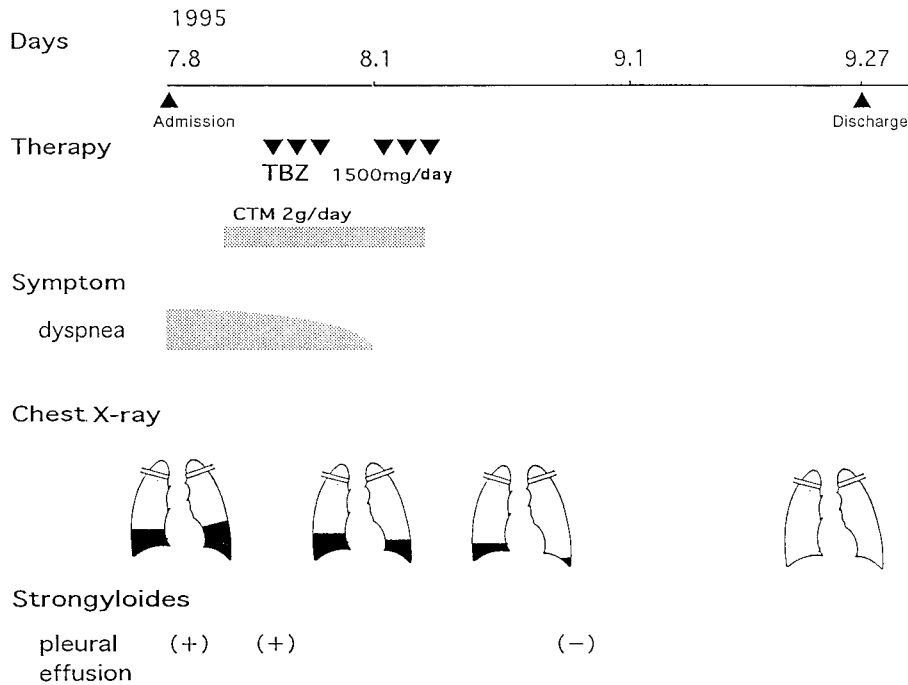


Fig. 5 Clinical course of the patient. TBZ : thiabendazole, CTM : cefotiam.

染状態により，宿主は虫体を長期間に渡って保有し，また何等かの原因により宿主の感染防御能低下に伴い虫体の量が異常に増加し，過剰感染と呼ばれる状態になり，播種性糞線虫症という重篤な病態を引き起こすことが知られている⁴⁾。

本症の診断は基本的に糞便や各種検体から幼虫を検出することによりなされている．本症例では胸水からのみ糞線虫が検出され，調べ得た他の検体からは検出されなかった．臨床的にも過剰感染および播種の兆候に乏しく，胸膜炎を主体とした糞線虫症と考えられた．しかし，十二指腸液検査や，鋭敏な糞便検査により糞線虫検出率は高くなることが知られており¹²⁾，その生活史を考慮すると，本症例においてもやはり消化管内に寄生していたものと推察される．一方，本症例の胸水からはラブリチス型幼虫が検出されたが，消化管より体内に侵入する糞線虫は一般的にフィラリア型によるとされている¹¹⁾．この要因としては成虫の気管支肺内への異所寄生が考えられている¹²⁾¹³⁾．本例の喀痰検査においては糞線虫は検出されなかったが，治療前に気管支鏡検査等が行い得ず，気管支肺内病変は検出し得なかった．一方，臨床的に本寄生虫の検出が困難なことも少なくなく，近年，本症の補助診断法として血清糞線虫抗体の測定がなされている¹²⁾．本症例では，血清の糞線虫抗体価は陰性であったが，その要因としては，偽陰性反応を示した可能性¹²⁾，また治療後の血清であったことから駆虫剤による抗体価の低下¹²⁾¹⁴⁾等が考えられた．

胸水貯留を来す疾患の中で寄生虫感染によるものは一般的に稀なものであるが，その中でアメーバ症，肺吸虫症やエキノコッカス症等が知られている¹⁵⁾．我々が検索し得た限りでは，胸水中から糞線虫の検出された報告は認められなかった．

本症例は血清抗 HTLV-I 抗体が陽性であった．糞線虫症と HTLV-I 感染との間には密接な関連があることが多くの報告においてなされている¹⁵⁾⁷⁾．斉藤ら¹⁾は，沖縄県における糞線虫感染者の抗 HTLV-I 抗体陽性率は 44.0% で，また逆に抗 HTLV-I 抗体陽性者における糞線虫の保有率は 18.2% と有意に高率で，両者の間には密接な関係があることを指摘している．HTLV-I 感染者ではなんらかの免疫異常の存在することが指摘されており，これが HTLV-I 感染者に見られる高い糞線虫保有率の一因と考えられている．更に，血清抗 HTLV-I 抗体陽性の糞線虫保有者の末梢血リンパ球では高率に HTLV-I provirus の monoclonal な組込みが見られることも報告され¹⁶⁾，糞線虫感染が HTLV-I キャリアから成人 T 細胞白血病 (adult T cell leukemia; ATL) 発病の危険因子として重要な役割を果たしている可能性も指摘されている¹⁷⁾．本症例は ATL 発症に至っていない HTLV-I キャリアと考えられたが，今後 ATL 発病の可能性についても注意深い観察が必要と思われる．また，HTLV-I 感染を合併した糞線虫症患者は治療抵抗性で難治化傾向を示すことが知られており¹⁸⁾⁹⁾本寄生虫症の再発の可能性についても注意が必要と思われる．

稿を終えるにあたり，血清糞線虫抗体を測定していただいた琉球大学寄生虫学教室，佐藤良也先生に深謝いたします。

付記；本症例の要旨は第35回日本胸部疾患学会九州地方会（1995年11月，久留米）において報告した。

文 献

- 1) 齊藤 厚：糞線虫．臨床と微生物 1990；17：103 107.
- 2) 城間祥行，佐藤良也：日本における糞線虫と糞線虫症．九州大学出版会 1997；169 191
- 3) 座覇 修，新村政昇，金城 渚，他：軽症糞線虫症患者にみられる臨床症状についての検討．感染症学雑誌 1992；66：1378 1382.
- 4) Rivera E, Maldonado N, Velez-Garcia E, et al: Hyperinfection syndrome with strongyloides stercoralis. Ann Int Med 1970；72：199 204.
- 5) Shlomo M, Gary PW, Josef W, et al: Strongyloides stercoralis hyperinfection in a patient with the acquired immunodeficiency syndrome. Am J Med 1987；83：945 948.
- 6) Petithory JC, Derouin F: AIDS and strongyloidiasis in Africa. Lancet 1987；921.
- 7) Nakada K, Kohakura M, Kamoda H, et al: High incidence of HTLV-I antibody in carrier of strongyloides stercoralis. Lancet 1984；1：633.
- 8) Sato Y, Toma H, Takara M, et al: Seroepidemiological studies on the concomitance of strongyloidiasis with T-cell leukemia viral infection in Okinawa, Japan. Jpn J Parasitol 1990；39：376 383.
- 9) Light RW, Macgregor I, Luchsinger PC et al: Pleural effusions: the diagnostic separation of transudates and exudates. Ann Int Med 1972；77：507 513.
- 10) Burgess LJ, Maritz FJ, Taljaard F: Comparative analysis of the biochemical parameters used to distinguish between pleural transudates and exudates. Chest 1995；107：1604 1609.
- 11) 城間祥行，佐藤良也：日本における糞線虫と糞虫症．九州大学出版会 1997；5 27.
- 12) 城間祥行，佐藤良也：日本における糞線虫と糞線虫症．九州大学出版会 1997；97 124.
- 13) Brouno P, Mcallister K, Matthews JI, et al: Pulmonary strongyloidiasis. Southern Med J 1982；75：363 365.
- 14) Shimabukuro S, Sato Y, Kobayashi J, et al: Immunoblot analysis of antibody response before and after treatment of human strongyloidiasis. Jpn J Trop Med Hyg 1993；21：149 155.
- 15) Light RW: Pleural effusion due to parasitic infection. Pleural Diseases. Lea & Febiger Philadelphia London 1990；171 175.
- 16) Nakada K, Yamaguchi K, Furugen S, et al: Monoclonal integration of HTLV-I proviral DNA in patients with strongyloidiasis. Int J Cancer 1987；40：145 148.
- 17) Yamaguchi K, Matutes E, Catovsky D, et al: Strongyloides stercoralis as candidate co-factor for HTLV-I-induced leukaemogenesis. Lancet 1987；2：94 95.
- 18) 城間祥行，佐藤良也：日本における糞線虫と糞線虫症．九州大学出版会 1997；125 148.
- 19) Sato Y, Shiroma Y, Kiyuma S, et al: Reduced effect of chemotherapy of strongyloidiasis in patients with concurrent HTLV-I infection in Okinawa. Japan Jpn J Trop Med Hyg 1992；20：183 192.

Abstract

A Case of Pleuritis Caused by Strongyloides in a Carrier of T-cell Lymphoma Virus Type I (HTLV-I)

Hideo Oya¹⁾, Shin-ichiro Mori¹⁾, Haruko Tsuchihashi¹⁾, Asutsugu Kurono²⁾,
Akira Mizoguchi³⁾, Masaharu Kawabata³⁾, Kimiyoshi Arimura³⁾
and Mitsuhiro Osame³⁾

Division of Respiratory Diseases,¹⁾ and Neurology²⁾ Department of Internal Medicine,
Akune City General Hospital, 4513, Akashegawa, Akune City, Kagoshima, Japan.
Third Department of Internal Medicine³⁾, Kagoshima University of
Medicine, 8-35-1, Kagoshima, Japan.

A 73-year-old woman was admitted to our hospital complaining of dyspnea, fever and general edema. Chest roentgenogram showed bilateral pleural effusion and cardiomegaly. Cardiovascular examination demonstrated atrial tachycardia and left ventricle dysfunction, suggesting congestive heart failure. She was sero-positive for human T-cell lymphoma virus I (HTLV-I). The dyspnea and general edema improved after therapy for heart failure. Because the pleural effusion persisted after therapy, thoracentesis was performed. The pleural effusion was an exudate, and *Strongyloides stercoralis* was detected by microscopy. Two courses of thiabendazole (1,500 mg/day, 3 days) were given orally. After this therapy, the pleural effusion improved markedly. This case suggests that *Strongyloides stercoralis* may be a causative agent of pleuritis in HTLV-I endemic areas.