

## ●症 例

## 健康成人に発症したムコールによる胸壁膿瘍の1例

富永 正樹 小宮 一利 岡本 純明  
梅口 仁美 松尾 綾子 岩永健太郎

要旨：症例は80歳の男性，2007年1月に前胸部の皮疹で当院皮膚科に通院中であったが，8月に痛みを伴うようになり，皮下から胸壁に広がる膿瘍を認めたため呼吸器科紹介となった。CTガイド下に穿刺・生検を行い，組織で類上皮細胞性肉芽腫は認めるものの，穿刺液の培養では特に有意な菌の検出はなかった。結核性膿瘍が最も疑われたため，診断的治療として抗結核剤の投与を開始した。治療開始後すぐに自己中断して来院されなくなったが，10月に自潰して疼痛も伴うようになり再診。2回目の生検結果も同様であり，抗結核薬を再開した。しかし，全く効果は認めず2008年8月に再増悪したため3回目の生検を行った。変性を伴った組織中に無隔菌糸の集塊を認め，ムコール感染症と診断した。アムホテリシンBリポソーム製剤の投与を行い，縮小した時点で外科的に切除を行った。その後追加投与を行い治療終了としたが，現在まで再発は認めていない。

キーワード：ムコール，胸壁膿瘍

Mucormycosis, Thoracic wall abscess

## 緒 言

ムコール症は，環境に遍在するムコール目の真菌による感染症であり，血液疾患，腎不全，糖尿病などの基礎疾患を有した患者に起こる日和見感染性の強い感染症と考えられている<sup>1)</sup>。今回我々は，特に基礎疾患を有しない高齢の男性の胸壁に発生したムコールによる膿瘍を経験したので報告する。

## 症 例

症例：80歳，男性。

主訴：前胸部痛。

家族歴：特記すべき事項なし。

生活歴：喫煙歴1日15本×40年間，飲酒歴なし。

既往歴：10年前より肺気腫を指摘されているが，特に治療はしていなかった。

現病歴：2007年1月ころより前胸部に皮疹が出現し，2月に当院皮膚科を受診。湿疹と診断され，対症療法で経過を見られていたが，8月に周囲がやや膨隆して痛みも伴うようになり，その際のCTで胸壁に腫瘤性病変を認めたため呼吸器科紹介となる。

入院時現症：身長161cm，体重53kg，意識清明，血

圧122/64mmHg，体温36.2℃，呼吸数16回/分。

表在リンパ節は触知しないが，前胸部正中からやや右側にかけて周囲がやや膨隆し，中央部が陥凹した病変を認めた。押すと内部へ陥没し，中央には膿性分泌物を伴っていたが熱感や疼痛は認めなかった。心音・呼吸音に異常は認めず，腹部や神経学的にも異常は認めなかった。

検査成績 (Table 1)：白血球増多は認めないが，軽度CRPの上昇を認めた。肝・腎機能正常で，HbA1cは5.3%だった。

画像所見：胸部CTで前胸部第2肋骨から胸骨にかけて，内部に液体貯留を伴う不整形の腫瘤を認め，一部は胸骨を破壊していた (Fig. 1a)。

経過：CT所見からは，腫瘍性病変よりは膿瘍，とくに抗酸菌感染症を疑い，CTガイド下生検を施行した。内部から無臭の膿汁が多量に採取され，また充実部分から採取した生検組織では，乾酪壊死は認めないが周囲に多核巨細胞を伴う類上皮細胞性肉芽腫の所見を認めた (Fig. 2a, b)。穿刺した液体の抗酸菌塗抹は陰性，PCR検査は結核菌・*Mycobacterium avium complex* とともに陰性で，細菌培養でも有意な菌の検出は認めなかった。QuantIFERON®-TB Gold検査も陰性ではあったが，一部肋骨の破壊像もあることから結核性胸壁膿瘍が最も疑われたため，診断的治療として抗結核薬 (Isoniazid + Rifampicin + Ethanbutol) の投与を開始した。また，immuno-compromised hostを念頭に置き全身検索を行ったが，糖尿病，悪性腫瘍などの基礎疾患は認めなかった。

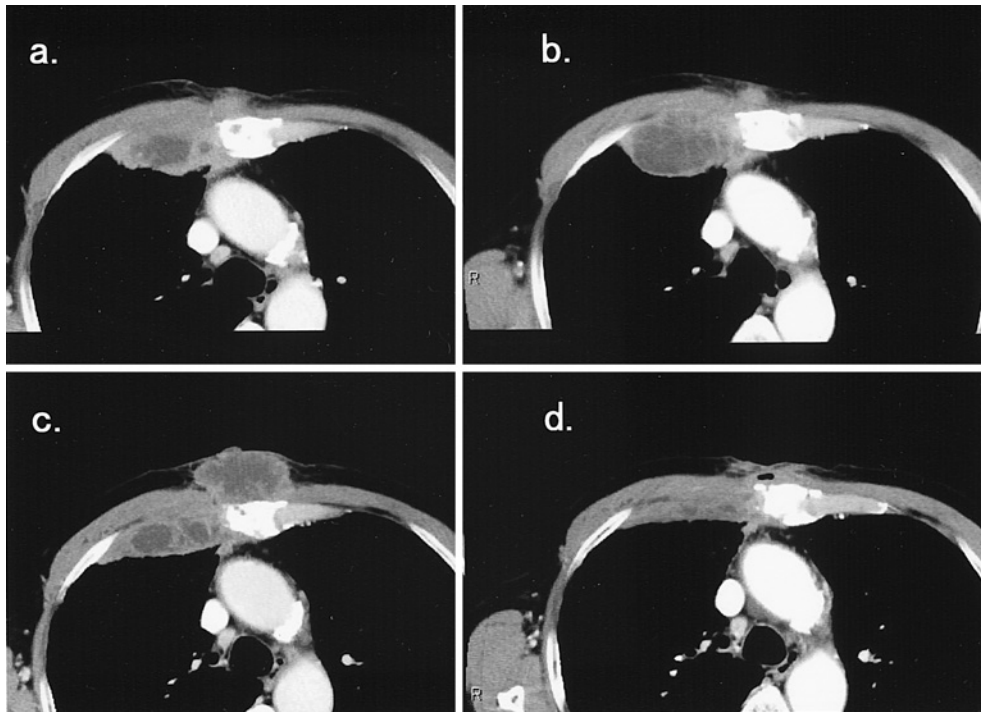


Fig. 1 (a) (Aug. 2007) Chest CT scan shows the formation of an abscess from the subcutaneous area to the thoracic wall. (b) (Feb. 2008) After treatment with antituberculous drugs for 3 months, the abscess formation revealed no change. (c) (Aug. 2008) The abscess formation had worsened. (d) (Nov. 2008) After the administration of L-AMB, his abscess markedly improved.

Table 1 Laboratory findings on admission

Hematology		Biochemistry	
WBC	4,800/ $\mu$ l	AST	25 IU/l
Neu Ly Mo Eo	70.7%	ALT	20 IU/l
	15.5%	LDH	219 IU/l
	6.3%	ALP	322 IU/l
	5.3%	$\gamma$ -GTP	15 IU/l
RBC	$329 \times 10^4$ / $\mu$ l	T-Bil	0.3 mg/dl
Hb	10.2 g/dl	TP	8.0 g/dl
PLT	$22.3 \times 10^4$ / $\mu$ l	BUN	16.6 mg/dl
		Cr	0.8 mg/dl
		Na	137 mEq/l
		K	4.4 mEq/l
		Cl	107 mEq/l
Serology			
CRP	2.08 mg/dl		
HbA1c	5.3%		
Cryptococcus Ag.	(-)		
Aspergillus Ag.	(-)		
$\beta$ -D-glucan	20 pg/ml		

治療開始直後より患者が来院されず放置されていたが、2007年10月に自潰して痛みを伴うようになり再診。2回目のCTガイド下生検を施行するも、同様の結果しか得られなかったが、やはり結核性膿瘍を疑い、抗結核剤の投与を再開した。3カ月投与したが全く変化は認め

ず (Fig. 1b), また抗酸菌の培養も陰性であったため、抗酸菌感染症は否定された。軽度縮小傾向にあったため無治療で経過観察していたが、2008年8月に再度増大してきたため (Fig. 1c), 3回目のCTガイド下生検を施行した。変性を伴った組織中に、無隔菌糸からなる病原体の集塊を認め (Fig. 2c), 形態からムコール症と診断した。そのため、入院して2008年9月中旬よりアムホテリシンBリポソーム製剤 (Liposomal amphotericin B: L-AMB, 140mg/day) の連日投与を開始したところ、病変部は急速に縮小してきた (Fig. 1d)。かなり縮小した時点 (投与総量 6,580mg) で、11月に佐賀大学医学部形成外科にて腐骨除去+皮弁形成術を施行した。切除標本でもムコールの菌体が確認されたため、術後も12月中旬までL-AMBの投与を継続し、2009年1月で終了 (総量 9,800mg) とした。2009年8月の時点で増悪は認めていない。

## 考 察

ムコール症の原因真菌には、ムコール目に属するムコール科 (*Mucor* 属, *Asidia* 属 *Rhizophus* 属, *Rhizomucor* 属), カニンガメラ科 (*Cunninghamella* 属) が多く、サ

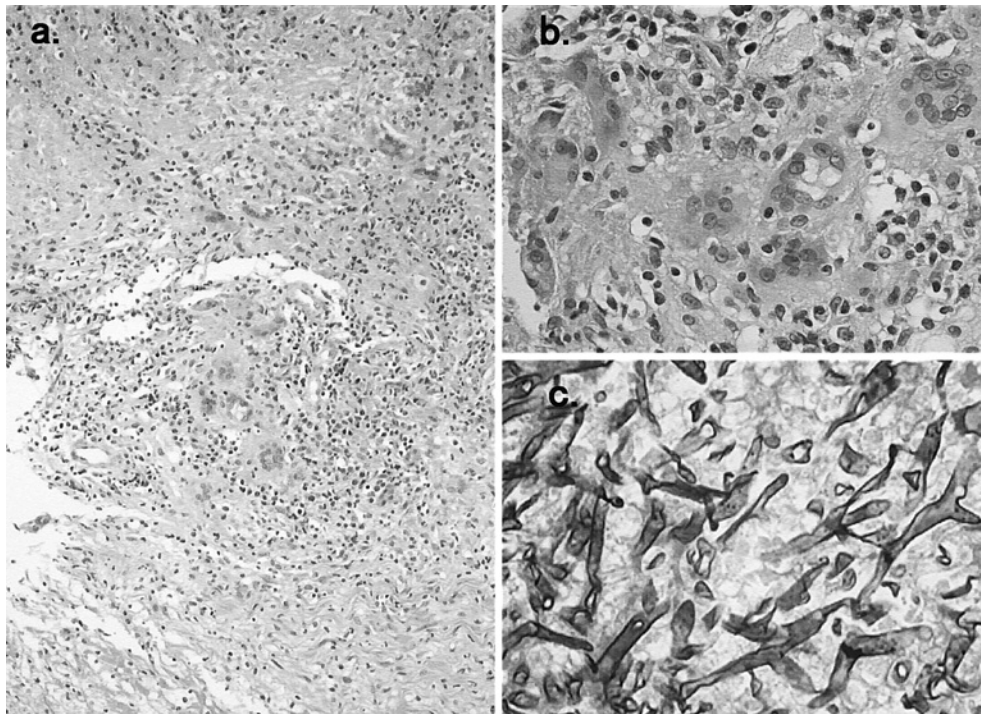


Fig. 2 (a) Histological findings obtained from CT-guided biopsy reveal epithelioid granuloma without caseous necrosis. (HE staining  $\times 100$ ) (b) Some Langhans' giant cells can be seen. (HE staining  $\times 200$ ) (c) Many pleomorphic, thin-walled fungal hyphae without septae can be seen. (Grocott staining  $\times 200$ )

クセネア科 (*Saksenaea* 属) やモルティエラ科 (*Mortierella* 属) も散見される。ムコール症は、科や属の違いを超えた感染症像の類似性から目に由来する<sup>2)</sup>。

ムコール症は、真菌感染症全体の約3~4%を占めており<sup>1)</sup>、侵入経路として、1) 吸入された胞子が副鼻腔か下気道に定着、2) 直接皮膚に定着、の2つの経路がある。さらに、一部は副鼻腔から脳へ、下気道から末梢肺へと進展して病巣を形成する。また、その中の一部が血管内に侵入して全身に播種し、重症化すると考えられているが、通常正常人には病原性を発揮することはない。糖尿病、ステロイド投与、造血器悪性腫瘍、Deferrioxamine 使用例などのハイリスク患者に、日和見感染症として発症するケースが多いが<sup>3)4)</sup>、海外では、それに加え臓器移植後や注射による麻薬常習者での報告例も多い<sup>5)</sup>。

一般には経過が急速であるため生前診断は困難とされ、菌が血管内に侵入しやすく予後不良の感染症である<sup>3)</sup>。しかし、皮膚型に限っては、ムコール症全体での死亡率54%に対して31%と低く、さらに限局していれば10%まで低下する<sup>5)</sup>。これは、皮膚型の半分は基礎疾患が無いことに起因すると思われる<sup>4)5)</sup>。

通常、培養で陽性となることはなく、組織での特徴的な菌糸の証明(ムコール菌糸は、組織内で15~20 $\mu\text{m}$ と太いが、幅は不規則で隔壁は無くほぼ直角に分岐する特徴を持つ)が最も信頼できる<sup>6)</sup>。

さて、本症例の場合、とくに基礎疾患もなく免疫状態も正常であり、侵入門戸が問題となるが、肺内には全く陰影はなく呼吸器症状も経過中認めなかったことから、皮膚から侵入したものと推測している。また、皮膚型と考えれば基礎疾患が無いことも合致する。

Francisら<sup>7)</sup>が肺ムコール症に関し詳細にまとめているが、87例中56例(64%)に発熱、53例(61%)に咳、32例(37%)に胸痛など何らかの症状を訴えている。また、画像所見として39%に浸潤影、26%に空洞性病変、18%に肺炎像を認めたとも報告している。本症例の場合、肺内病変は無く、経過中呼吸器症状や急性感染症を思わせる症状もなかったことから、肺内から胸壁に拡がったとは考えにくい。

一般的に、免疫能が正常である場合、皮膚型では表層型を呈し、自覚症状の無い小水疱や膿疱を主体として発症する<sup>8)9)</sup>。本症例の場合、発症時には湿疹と診断されており、ムコール症による皮膚病変であった可能性は低いが、そこにステロイド外用剤を塗布したことで、ムコールの侵入を容易にした可能性は否定できない。通常では、潰瘍化しても皮下脂肪織までに病変が限局するとされ<sup>8)9)</sup>、また病変が限局するため予後は良いとされている。Maureenら<sup>5)</sup>のまとめでは、929例中176例(19%)が皮膚型であり、殆どの症例に基礎疾患はなく、外傷や熱傷に伴う局在病変での発生例が多い。また、176例中43

例（24%）に骨や筋肉など深部への浸潤が認められたと報告しているが、その場合でも死亡例はごく僅かである。

皮膚型の場合、一般には露出部に多いとされ胸壁にも生じるとされているが<sup>10)</sup>、両者の場合でも、皮下型ではRyan<sup>8)</sup>の報告と同様に真皮までにとどまるとされている。しかし、本症例の場合、皮下からさらに進展して胸壁にまで波及しているにもかかわらず、免疫能が正常なためか急速に悪化することなく長期間に及び経過しており、非常に稀有な症例と考えられる。

治療にはL-AMBが奏効し、病変は著明に縮小したが、最終的には外科的に切除せざるを得なかったが、治療することができた。

### おわりに

健康成人に発症する胸壁膿瘍の中に、稀ではあるがムコール感染症が原因である場合があり、診断が困難で治療に難渋するため注意が必要であると思われたため報告した。

本論文の要旨は、第62回日本呼吸器学会九州地方会（2009年11月26日 北九州）にて報告した。

### 引用文献

- 1) Lehrer RI, Howard DH, Syphred PS. Mucormycosis. *Ann Intern Med* 1980; 93: 93—108.

- 2) 占部治邦. 医真菌学. 金原出版, 東京, 1993; 237—245.
- 3) Joshi N, Caputo G, Weitekamp M, et al. Infectious in patients with diabetes mellitus. *New Engl J Med* 1999; 341: 1906—1912.
- 4) 森 健, 江頭元樹, 川又紀彦, 他. 2症例の報告および本邦報告例の検討. *真菌誌* 2003; 44: 163—179.
- 5) Maureen MR, Theoklis EZ, Wendy LB, et al. Epidemiology and outcome of Zygomycosis: a review of 929 reported cases. *Clin Infect Dis* 2005; 41: 634—653.
- 6) 山本宏司. 菌球型肺ムコール症. *日胸疾会誌* 1998; 57: 116—118.
- 7) Francis YWL, Sherif BM, Kartir AA. Pulmonary mucormycosis. *Arch Internal Medicine* 1999; 159: 1301—1309.
- 8) Ryan ME, Ochs J. Primary cutaneous mucormycosis: superficial and gangrenous infections. *Pediatr Infect Dis J* 1982; 1: 110—114.
- 9) 福島孝吉. 真菌症. 金原出版, 東京, 1968; 168—175.
- 10) Hurlé A, Campos-Herrero MI, Rodríguez H, et al. Cutaneous mucormycosis of the thoracic wall. *Clin Infect Dis* 1996; 22: 373—374.

### Abstract

#### A case of mucormycosis of the thoracic wall in a non-immunocompromised man

Masaki Tominaga, Kazutosi Komiya, Sumiaki Okamoto, Hitomi Umeguchi,  
Ayako Matsuo and Kentaro Iwanaga

Department of Internal Medicine, Saga Prefectural Hospital, Koseikan

An 80-year-old man visited our hospital for the treatment of an anterior chest wall eruption from February 2007 and presented with dull pain in August 2007. He was referred to our department because chest CT showed the formation of an abscess from the subcutaneous area to the thoracic wall. Histological findings obtained from CT-guided biopsy revealed epithelioid granuloma without caseous necrosis, but both acid-fast bacteria and bacteriologic culture obtained from aspirated fluid samples were negative. Antituberculous therapy was selected because a tuberculous abscess was strongly suspected. However, the patient discontinued treatment soon after therapy began. He visited our hospital again for chest pain due to rupture of the abscess in October 2007. The pathological findings obtained from a second biopsy gave the same results, and antituberculosis therapy was restarted. However, his CT findings had worsened by August 2008, and a third biopsy was performed. Histopathologically, we diagnosed mucormycosis based on the findings of fungal hyphae, with broad, irregular branching at right angles. Thereafter, liposomal amphotericin B (L-AMB) was given intravenously and the abscess markedly improved. Excision was then performed, followed by adjuvant L-AMB administration, and there has been no recurrence to date.