

●症 例

FDG-PET で肺結節影, 右肺門・縦隔リンパ節に集積亢進を認めた

ウエステルマン肺吸虫症の1例

谷村 和哉 北 英夫 金光 禎寛 伏屋 芳紀
片山 優子 西原 祐美 千葉 渉 菅 理晴

要旨：症例は47歳在日中国人女性。2カ月来の血痰を主訴に当院を紹介され受診した。¹⁸F-fluoro-deoxyglucose-positron emission tomography (FDG-PET) で右上葉の25mm大の結節影と右肺門・縦隔リンパ節にFDGの集積亢進を認めた。血液検査では好酸球増多は認めず、血清IgEは軽度上昇していた。気管支鏡検査では細菌や真菌、抗酸菌は検出されなかったが、気管支擦過細胞診でClass IIIと判定された。肺癌の可能性を考え、右肺上葉部分切除術を施行した。病理組織像でリンパ球と好酸球を主体とした炎症細胞浸潤と寄生虫虫卵を認めた。血清学的検査、形態学的特徴、生カニの摂取歴からウエステルマン肺吸虫症と診断した。ウエステルマン肺吸虫症では肺癌との鑑別が困難な画像所見を呈する例があり、注意が必要である。

キーワード：ウエステルマン肺吸虫, FDG-PET, *Paragonimus westermani*,
¹⁸F-fluorodeoxyglucose-positron emission tomography

緒 言

現在、胸部異常陰影の鑑別の一助として¹⁸F-fluoro-deoxyglucose-positron emission tomography (FDG-PET) が高頻度に用いられているが、肺癌以外の疾患で集積が亢進することも少なくない。今回われわれはFDG-PETで肺結節影、肺門リンパ節、縦隔リンパ節に集積亢進を認めたウエステルマン肺吸虫症の1例を経験した。このような画像所見を呈するウエステルマン肺吸虫症は珍しいと考え報告する。

症 例

症例：47歳、女性。

主訴：血痰。

既往歴、家族歴：特記事項なし。

職業：中華料理店経営。

生活歴：中国大連出身で9年前から日本に在住。5本/日×23年の既喫煙者。粉塵吸入歴なし。ペット飼育歴なし。

現病歴：2カ月来の血痰を主訴に2010年1月に近医を受診した。胸部異常陰影を指摘され当院を紹介され受

診した。胸痛や発熱はなく軽度の咳嗽を自覚していた。

現症：身長164.5cm, 体重58kg, 体温35.9℃, 血圧110/66mmHg, 脈拍54/min, SpO₂ 98% (室内気)。呼吸音は正常肺胞音で左右差はなし。心雑音なし。表在リンパ節触知せず。腹部は平坦、軟で圧痛なし。皮疹なし。

来院時血液検査所見 (Table 1)：末梢血白血球数は7,100/μl, 好酸球分画は3.3%と好酸球増多は認めなかった。血清IgEは355IU/lと軽度上昇を認めた。赤沈は64mm/1hrと亢進していた。腫瘍マーカーはCEA, CYFRA21-1, PRO-GRPの上昇を認めず、クリプトコッカス抗原は陰性、β-Dグルカンは上昇を認めず、クオンティフェロン[®]-TB 2Gは陰性だった。

胸部単純写真所見 (Fig. 1)：右上肺野内側に直径2.5cm大の結節影を認めた。右肺門部の腫脹、右肋骨横隔膜角の鈍化を認めた。

胸部CT所見：右上葉S1に25mm大の単発性の腫瘤を認めた。腫瘤辺縁の境界は一部不整で、内部の造影効果は一部不均一だった。腫瘤は右腕頭静脈に接し、腫瘤から下方に限局性に縦隔胸膜肥厚を認め、右胸水貯留も認めた。右肺門リンパ節と右下部気管傍リンパ節の腫大を認めた。

FDG-PET所見 (Fig. 2)：右上葉S1の腫瘤に最大Standard Uptake Value (SUVmax) 早期相 (60分)/後期相 (120分)：5.6/6.3と後期相で増強するFDGの強い集積を認めた。さらに、右肺門リンパ節 (SUVmax早

Table 1 Laboratory findings on admission

Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	7,100/ μ l	TP	8.3 g/dl	CEA	0.6 ng/ml
Lymph	15.3%	GOT	53 IU/l	CYFRA21-1	0.3 ng/ml
Mono	5.0%	GPT	21 IU/l	PRO-GRP	4.4 pg/ml
Neutro	76.0%	LDH	225 IU/l	sIL-2R	253 U/ml
Eosino	3.3%	BUN	11.1 mg/dl	ACE	11.1 U/l
Baso	0.4%	Cr	0.6 mg/dl	IgE	355 IU/l
RBC	4.34×10^6 / μ l	CRP	<0.3 mg/dl	KL-6	224 U/ml
Hb	13.1 g/dl			SP-D	20.4 ng/ml
Plt	26.1×10^4 / μ l			Cryptococcus Ag	(-)
ESR	64 mm/1hr			β -D glucan	5.3 pg/ml
				Aspergillus Ag	(-)
				QuantiFERON [®] -TB2G	
				ESAT-6	<0.05
				CFP-10	<0.05



Fig. 1 A chest X-ray film on admission shows a nodular lesion in the right upper lung field, right hilar lymphadenopathy and pleural effusion.

期相/後期相: 3.6/5.7) と右下部気管傍リンパ節 (SUVmax 早期相/後期相: 4.1/5.5) に後期相で増強する FDG の強い集積を認めた。胸膜肥厚に SUVmax 2 程度と軽度に FDG 集積を認めた。

臨床経過: 原発性肺癌を疑い右肺上葉の腫瘍に対して気管支鏡検査を実施した。右上葉気管支入口部で浮腫状に狭窄を認めた。右 B'a で気管支擦過標本を採取した。細胞診では粘液により核が圧排された杯細胞増生を認め、Class III と判定された。気管支洗浄標本では細菌、真菌、結核菌は検出されなかった。経気管支生検標本では気管支間質および肺胞隔壁に単核球浸潤を認め好酸球も散見された。肉芽腫は認めず、非特異的な炎症所見と考えた。これまでの経過から肺腺癌の可能性を考え、患者同意を得て診断目的に外科的肺生検を実施した。右肺尖部の癒着は強固で胸腔鏡での右上葉腫瘍の観察は困難だった。このため、開胸にて癒着剝離と右上葉部分切除術を行った。摘出した標本の剖面から黄白色膿汁の流出

を認めた。病理組織学的にはリンパ球と好酸球からなる炎症細胞浸潤を伴った肉芽腫を認め、凝固壊死も認めた。さらに $50 \times 60 \mu\text{m}$ 大の楕円形の寄生虫虫卵を多数認めた (Fig. 3)。患者本人から 2008 年秋頃に日本国内の市場で購入した淡水産カニを生食し、摂取後に腹痛と発熱を発症したことを確認した。抗寄生虫抗体価を測定し、抗ウエステルマン肺吸虫 IgG 抗体と抗宮崎肺吸虫 IgG 抗体の抗体価の上昇を認めた。虫卵の形態学的特徴、病歴からウエステルマン肺吸虫症と診断した。プラジカンテル $75\text{mg}/\text{kg}/\text{day}$ を 3 日間内服で投与した。治療 3 カ月後に抗ウエステルマン肺吸虫 IgG 抗体価を再度測定し低下を認めた。胸部 CT でもリンパ節縮小を認めた。治療奏効と判断し現在経過観察中である。

考 察

ウエステルマン肺吸虫症は人獣共通寄生虫疾患で、第 2 中間宿主であるモズクガニ、サワガニなどの淡水産甲殻類や待機宿主であるイノシシなどを生食もしくは加熱不十分な状態で経口摂取することで感染する。本邦での新規症例数は年間数 10 例と報告されている¹⁾。

本症例は FDG-PET で肺結節影、肺門リンパ節、縦隔リンパ節に強い FDG 集積を認め、そのほかの臨床所見からも肺癌との鑑別に難渋したウエステルマン肺吸虫症の 1 例である。

ウエステルマン肺吸虫症の画像所見は肺結節影 (76.9%)、胸水貯留 (69%) を呈することが多く、結節影の多くは単発性であったと報告されている²⁾。さらに縦隔リンパ節腫大は 38.4% で認めたと報告されている。ウエステルマン肺吸虫症では単発性の結節影を呈する頻度は高く、縦隔リンパ節腫大を呈することもまれではないため、本症例のように胸部 CT では原発性肺癌との鑑別が困難な症例が存在する。

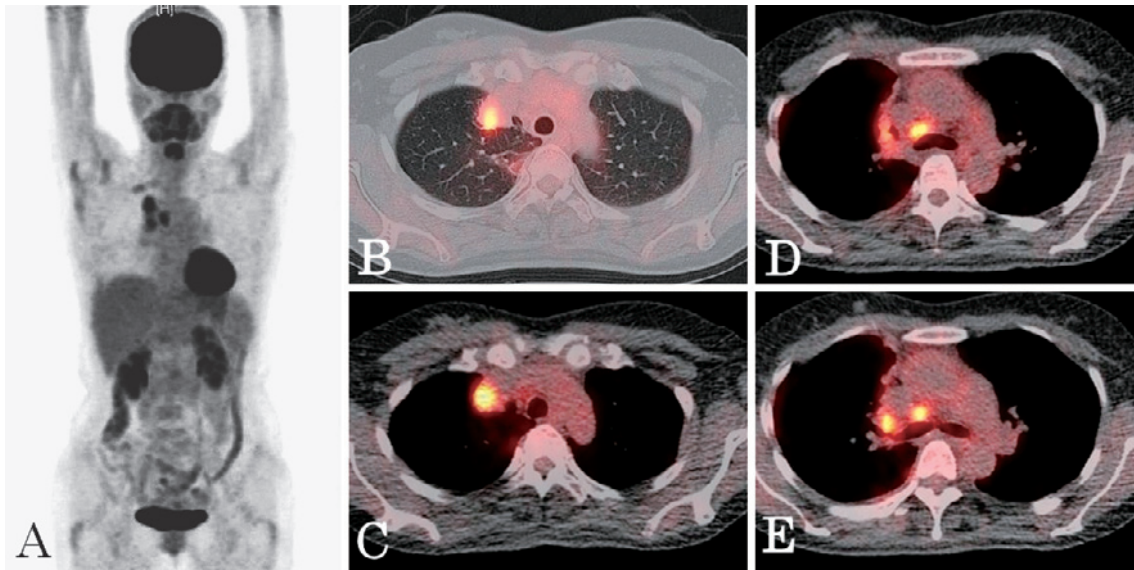


Fig. 2 FDG-PET shows elevated FDG uptake into a pulmonary nodular lesion in the right upper lobe (SUVmax, early image (60 min): 5.6; delayed image (120 min): 6.3) (A) (B) (C), right hilar (SUVmax, early image: 3.6; delayed image: 5.7) (D) and right lower paratracheal lymph nodes (SUVmax, early image: 4.1; delayed image: 5.5) (E), and also shows partial FDG uptake into the locally thickened pleura (D).

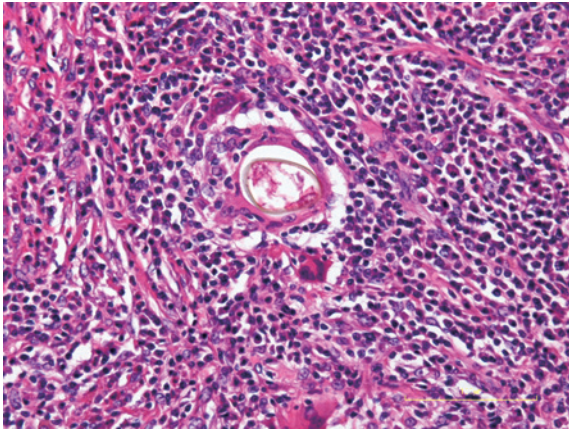


Fig. 3 Histopathological findings of a pulmonary nodular lesion in the right upper lobe show helminthic eggs surrounded by dense inflammatory infiltrates which mainly consisted of lymphocytes and eosinophils (hematoxylin-eosin stain, $\times 400$).

原発性肺癌との鑑別が問題となる肺結節影や浸潤影に対し、FDG-PETは近年、質的診断目的に頻用されている。Gouldらのmeta-analysisでは肺結節影に対するFDG-PETの悪性腫瘍診断精度は感度96.8%、特異度77.8%と報告されている³⁾。SUVmax 2.5を閾値とした場合の悪性腫瘍診断精度は感度80%、特異度94%、一方、早期相から後期相との間でのSUVmaxの10%の上昇を閾値とした場合の診断精度は感度100%、特異度89%と報告されているが⁴⁾、SUVmaxの数値とその時間

推移が肺結節影の良性悪性の鑑別に用いられている。本症例では右肺門リンパ節、縦隔リンパ節の腫大を伴った単発性の結節影を認めただけでなく、FDG-PETで肺結節影、右肺門リンパ節、縦隔リンパ節のいずれも早期相でのSUVmaxは3以上を示し、後期相でSUVmaxの10%以上の上昇を示した。この画像所見から原発性肺癌の可能性を第一に考え、それを前提として検査を進めたために、他の疾患を想定した詳しい病歴の聴取や検査が不十分だったと考えられる。

ChangらはFDG-PET偽陰性の例として小型の腫瘍やムチン産生性腺癌、細気管支肺胞上皮癌を報告している⁵⁾。一方、偽陽性の例として結核やサルコイドーシス、クリプトコッカス症、放射線性肺臓炎、硬化性血管腫を報告し、好中球や活性マクロファージなどの炎症細胞浸潤、活動性肉芽腫、活動性線維化病変へのFDG集積によるとしている。

FDG-PETにて偽陽性を呈したウエステルマン肺吸虫症の報告はChangらも1例報告しており、そのほかにも数例⁶⁾⁷⁾みられるがまだまだ多くはない。特に肺結節影、肺門リンパ節、縦隔リンパ節へのFDG集積を認めた症例は検索しえた範囲ではYooらの1篇2例⁸⁾のみと非常に少ない。ウエステルマン肺吸虫症の本邦での発生頻度そのものが少なく、また、FDG-PETは近年普及した検査手段であり、FDG-PET偽陽性例の鑑別疾患としての肺吸虫症は十分に認知されているとはいいがたい。本症例でも初診時に肺吸虫症を想定した問診はなされなかった。

また、しばしば本症診断の契機となる血液検査値異常についても注意が必要である。床島らは末梢血好酸球数 500/ μ l 以下の症例は 43.5%、血清 IgE 394IU/l 以下の症例は 33.3% だったと報告しており⁹⁾、好酸球増多や血清 IgE の上昇を認めない場合も多い。本例でも好酸球増多は認めず血清 IgE は 355IU/l と軽度の上昇を認めたのみだった。また、気管支鏡検査で細菌、真菌、結核菌は認めず、擦過細胞診で Class III と判定されたため、原発性肺癌の可能性を特に考えた。さらに、感染から発症までの潜伏期間や症状経過についても同様ではない。ウエステルマン肺吸虫症の初期臨床像を追えた神崎らの報告¹⁰⁾ではサワガニの生食後約 1 週間で腹部症状を伴う発熱を発症し、約 6 週間から 14 週間の間に咳嗽や喀痰、胸痛などの胸部症状を呈したとしている。一方で感染機会から呼吸器症状発症まで約 3 年を経過した報告¹¹⁾もある。本症例でも原因となる食材を摂取し 1 年以上経過してから呼吸器症状を発症している。発症前の長期間にわたって原因となる食材を摂取した機会の有無を確認することが临床上重要と考えられる。

肺吸虫症は FDG-PET で肺結節影、肺門リンパ節、縦隔リンパ節に FDG 集積を伴い肺癌と酷似した画像所見を呈することがあると改めて認識する必要があると考えられる。また、画像診断の限界を認識し、病理診断を得る努力が不可欠であると考えられる。さらに、ウエステルマン肺吸虫症では比較的多くの症例で好酸球増多や血清 IgE の上昇がみられず、その症状の時間経過も多様である。その診断に際しては、まずその可能性を疑い、原因となる食材を摂取した機会の有無について積極的な病歴の聴取が重要であると考えられる。

謝辞：本症例の寄生虫抗体価測定ならびに診断のご助言をいただきました宮崎大学医学部感染症学講座寄生虫学分野丸山治彦教授に深謝いたします。

引用文献

1) 丸山治彦, 名和行文. 肺吸虫. 日胸 2007; 66: 269—

- 275.
- 2) Mukae H, Taniguchi H, Matsumoto N, et al. Clinicoradiologic features of pleuropulmonary *Paragonimus westermani* on Kyusyu Island, Japan. *Chest* 2001; 120: 514—520.
 - 3) Gould MK, Maclean CC, Kuschner WG, et al. Accuracy of positron emission tomography for diagnosis of pulmonary nodules and mass lesions: a meta-analysis. *JAMA* 2001; 285: 914—924.
 - 4) Matthies A, Hickeson M, Cuchiara A, et al. Dual time point 18F-FDG PET for the evaluation of pulmonary nodules. *J Nucl Med* 2002; 43: 871—875.
 - 5) Chang JM, Lee HJ, Goo JM, et al. False positive and false negative FDG-PET scans in various thoracic diseases. *Korean J Radiol* 2006; 7: 57—69.
 - 6) Watanabe S, Nakamura Y, Kariatsumari K, et al. Pulmonary paragonimiasis mimicking lung cancer on FDG-PET imaging. *Anticancer Res* 2003; 23: 3437—3440.
 - 7) Osaki T, Takama T, Nakagawa M, et al. Pulmonary *Paragonimus westermani* with false-positive fluorodeoxyglucose positron emission tomography mimicking primary lung cancer. *Gen Thorac Cardiovasc Surg* 2007; 55: 470—472.
 - 8) Yoo JeR, Park HJ, Hyun J, et al. Two cases of pulmonary paragonimiasis on FDG-PET CT imaging. *Ann Nucl Med* 2006; 20: 311—315.
 - 9) 床島眞紀, 迎 寛, 佐野ありさ, 他. ウエステルマン肺吸虫症 23 例の臨床的検討. 日呼吸会誌 2001; 39: 910—914.
 - 10) 神崎哲人, 田中 真, 野崎 忠, 他. ウエステルマン肺吸虫症の初期臨床像, 皮内反応の陽転時期およびプラジカンテルの有効性の検討. 日胸疾会誌 1985; 23: 368—374.
 - 11) 金木利通, 久保恵嗣, 田中直樹, 他. ウエステルマン肺吸虫症の 1 例. 日呼吸会誌 1998; 36: 623—626.

Abstract

A case of *Paragonimus westermani* with elevated FDG uptake into a pulmonary nodular lesion and right hilar and mediastinal lymph nodes on FDG-positron-emission tomography

Kazuya Tanimura, Hideo Kita, Yoshihiro Kanemitsu, Yoshinori Fuseya, Yuko Katayama,
Yumi Nishihara, Wataru Chiba and Michiharu Suga
Department of Respiratory Medicine, Takatsuki Red Cross Hospital

A 47-year-old Chinese woman living in Japan was referred with a 2-month history of cough with hemoptysis. ¹⁸F-fluorodeoxyglucose-positron emission tomography (FDG-PET) showed increased FDG uptake into a pulmonary nodular lesion 25mm in greatest dimension in the right upper lobe, and right hilar and mediastinal lymph nodes. Laboratory investigation did not reveal either eosinophilia or a marked elevation of serum IgE titer. A culture of bronchial lavage fluid was sterile and culture for mycobacteria was negative. Cytological examination results of transbronchial brushing samples were Class III. A partial resection of the right upper lobe was performed because of the possibility of primary lung cancer. Pathological examination of the nodular lesion showed helminthic eggs surrounded by dense inflammatory infiltrates, which mainly consisted of lymphocytes and eosinophils. Based on the findings of a serological study for helminth, the morphological characteristics of the eggs and the patient's history of eating raw crab, the patient was given a diagnosis of *Paragonimus westermani*, which can mimic primary lung cancer.