

●症 例

Lemierre 症候群に続発した感染性肺動脈仮性動脈瘤の 1 例

足立 雄太 山名 高志 齋藤 弘明
山下 高明 齊藤 和人 篠原 陽子

要旨：症例は 28 歳，男性。化膿性扁桃炎に敗血症性肺塞栓症を合併し Lemierre 症候群と診断されたが，抗菌薬治療への反応に乏しく肺病変の増悪により大量咯血をするに至った。気管支動脈塞栓術により出血は消退したが，少量の咯血が持続した。肺動脈系の精査で肺動脈仮性動脈瘤が認められ，コイル塞栓術により完全な止血が得られた。一般細菌感染に伴う肺動脈仮性動脈瘤は，まれな疾患ではあるが重篤な転帰をたどる可能性があり，呼吸器感染症に伴う咯血の場合は同疾患の可能性も考慮する必要がある。

キーワード：Lemierre 症候群，肺動脈仮性動脈瘤

Lemierre's syndrome, Pulmonary artery pseudoaneurysms (PAPs)

緒 言

Lemierre 症候群は，咽喉頭領域の先行感染の後に内頸静脈の血栓性静脈炎，全身への敗血症性塞栓症をきたす感染症である。今回我々は，Lemierre 症候群に肺動脈仮性動脈瘤を合併した症例を経験したため報告する。

症 例

症例：28 歳，男性。

主訴：咽頭痛。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

生活歴：喫煙歴 5 本/日，飲酒歴：少量機会飲酒。

現病歴：X 年 1 月 15 日咽頭痛・発熱を主訴に近医を受診しアンピシリン（ampicillin：ABPC）が処方されたが改善せず，1 月 22 日からアジスロマイシン（azithromycin：AZM）に変更された。しかし症状は増悪し，1 月 23 日に当院へ救急搬送され，同日化膿性扁桃炎の加療目的に当院耳鼻咽喉科に入院した。

入院時現症：身長 178 cm，体重 72 kg，体温 38.6℃，血圧 107/68 mmHg，心拍数 100 bpm，経皮的動脈血酸素飽和度（SpO₂）98%（室内気）。頭頸部：右頸部リンパ節腫大，右口蓋扁桃に膿栓付着。胸部：心音純，呼吸音清。腹部：平坦，軟，圧痛なし，腸蠕動音聴取。四肢：下腿

浮腫なし，皮疹なし。神経：特記すべき異常所見なし。

入院時検査所見（表 1）：炎症反応の上昇，血小板減少，腎機能障害，凝固異常，尿蛋白・潜血・円柱の出現から化膿性扁桃炎による敗血症，急性腎障害の状態と考えられた。血液培養からは *Fusobacterium* 属が検出された [抗菌薬感受性はエリスロマイシン（erythromycin）のみ耐性]。

画像所見：胸部単純 CT（図 1）では胸膜下優位に最大径 20 mm 程度の内部に air bronchogram を伴う結節影が多発していた。

臨床経過：入院同日から化膿性扁桃炎に対しピペラシリン/タゾバクタム（piperacillin/tazobactam：PIP/TAZ）13.5 g/日が投与され，咽喉頭・頸部の自覚症状および他覚所見は改善したが第 5 病日から胸痛・呼吸困難感が出現し，胸部単純 X 線写真では両側肺の浸潤影・胸水貯留が急激に増悪したため（図 2），第 6 病日に呼吸器内科へ転科した。同日からメロペネム（meropenem：MEPM）3 g/日への変更とポリミキシン B 固定化線維カラムによる直接血液灌流法（polymyxin B-immobilized fiber column-direct hemoperfusion：PMX-DHP）を施行したが肺病変の改善に乏しく，第 11 病日に大量咯血し人工呼吸器管理となった。同日気管支動脈造影を施行し右気管支動脈中葉枝の末梢で淡い増強域の出現を認め，溢出（extravasation）の所見と考え同部位の塞栓術を施行した。塞栓術直後に行った気管支鏡検査では速やかに出血が消退しており，小康状態を得て抜管したが少量の咯血が持続した。第 17 病日に行った胸部造影 CT で右肺動脈下葉枝に肺動脈仮性動脈瘤を認め（図 3），第 22 病日に肺動脈造影を施行した。右肺動脈 A8b 末梢に仮性動

連絡先：篠原 陽子

〒300-0053 茨城県土浦市真鍋新町 11-7

総合病院土浦協同病院呼吸器内科

(E-mail: tairadate80@gmail.com)

(Received 20 Aug 2015/Accepted 1 Feb 2016)

脈瘤が描出され (図 4), 同部位にコイル塞栓術を施行した。塞栓術後は完全な止血が得られ, MEPM を第 33 病日まで継続したところ炎症反応は陰性化し, 増悪なく経過したため第 43 病日に退院した。



図 1 入院時胸部単純 CT. 胸膜下優位に多発する結節影が認められる (赤矢印).

考 察

Lemierre 症候群は, 咽喉頭領域の先行細菌感染による炎症が内頸静脈へ波及することで起こる, 内頸静脈の感染性血栓性静脈炎, 嫌気性菌による菌血症, 肺をはじめとした全身への敗血症性塞栓症を呈する病態で 1936 年に Lemierre が自験例 20 例を報告したことから命名された疾患である¹⁾. 報告された当時は患側内頸静脈結紮および切除のみが治療法であり, 死亡率は高かったが, 1960~1970 年代に入り咽頭炎に対しペニシリンをはじめとする抗菌薬が広く使われるようになって以降, “forgotten disease” とされるほど罹患率は減少していた²⁾. しかしながら 1990 年代より罹患率の増加が認められており, その原因として咽頭炎に対する抗菌薬使用の制限が考えられている^{3,4)}.

Lemierre 症候群の起原因菌は *Fusobacterium* 属 (*F. necrophorum* が主) が最多 (90%) とされており³⁾, 本

表 1 入院時血液検査所見

血算		生化学		尿定性	
WBC	<u>26,900/μl</u>	TP	6.9 g/dl	尿比重	1.02
(Seg)	93.7%	Alb	3.5 g/dl	pH	5.5
Hb	15.0 g/dl	UA	8.4 mg/dl	蛋白	(2+)
MCV	87.3 fl	BUN	<u>24 mg/dl</u>	尿糖	(-)
MCH	31.9 pg	Cr	<u>1.79 mg/dl</u>	ケトン体	(±)
MCHC	36.6%	Na	135 mEq/L	潜血	(2+)
Plt	<u>6.8 × 10⁹/μl</u>	K	3.5 mEq/L	白血球反応	(-)
凝固		Cl	99 mEq/L	尿沈渣	
Fib	<u>562 mg/dl</u>	Amy	33 IU/L	赤血球	1~4/HPF
PT	11.9 s	AST	34 IU/L	白血球	<1/HPF
PT%	78%	ALT	34 IU/L	硝子円柱	(2+)
PT-INR	1.13	T-Bil	<u>1.9 mg/dl</u>	顆粒円柱	(2+)
APTT	36.5 s	LDH	<u>252 IU/L</u>		
FDP	<u>19.2 μg/ml</u>	血清			
D-dimer	<u>9.7 μg/ml</u>	CRP	<u>35.45 mg/dl</u>		



図 2 胸部単純 X 線写真の経過. 両側肺内浸潤影, 胸水貯留が増悪している。

症例では内頸静脈における血栓性静脈炎の画像的な証拠は得られていないが、化膿性扁桃炎に起因する敗血症性肺塞栓症が示唆されたこと、血液培養から本症に特徴的な嫌気性菌である *Fusobacterium* 属が検出されたことから総合して、Lemierre 症候群と診断した。出血源として肺動脈仮性動脈瘤が主である可能性も考慮したが、気管支動脈造影の所見が extravasation と考えられたこと、明らかな気管支動脈肺動脈異常吻合を認めなかったこと、および塞栓術直後の気管支鏡所見で出血が速やかに消退していたことから、本症の経過においては気管支動脈からの出血が主因と考えられ、病態としては感染性肺病変による気管支動脈の脆弱化が考えられた。その後の少量の咯血の持続は肺動脈瘤塞栓術で完全に止血できたことから、肺動脈仮性動脈瘤からの微細な出血であったと考えられた。

後天性肺動脈仮性動脈瘤の原因疾患として細菌感染（結核に伴うものは Rasmussen 動脈瘤と呼ばれる）、ベーチェット病などの炎症性疾患、医原性、外傷、腫瘍が挙げられる⁵⁾。肺動脈仮性動脈瘤の発生頻度について、Sbano らによる、血管造影が行われた咯血患者 76 名対象

の後ろ向き検討では、11%の患者に肺動脈仮性動脈瘤が認められていた⁶⁾。また Sakuma らは、我が国での 65 例の末梢性肺動脈瘤のうち 9 例が感染性肺動脈瘤であったと報告している（結核菌・真菌感染を含む）⁷⁾。

結核菌感染を除く一般細菌感染症に肺動脈仮性動脈瘤を合併した成人症例の報告例は、我々が検索しえたかぎりでは表 2 に記載の 11 例であった。11 例の仮性動脈瘤の原因疾患は肺膿瘍が 5 例、感染性心内膜炎が 4 例、細菌性肺炎が 1 例、肺癌による閉塞性肺炎が 1 例であった。以上の報告例および本症例において肺病変が増悪していた経過も含めると、コントロール不良な感染性肺病変による炎症の肺動脈への波及が仮性動脈瘤の成因として考えられた。予後に関しては上記報告例全例で軽快の転帰をたどっており、抗菌薬単独での治療例も 5/11 例で認められた。一方で Monchik らは末梢性肺動脈瘤 35 例中 21 例が破裂による咯血で死亡したと報告している⁸⁾。一般細菌感染に伴う肺動脈仮性動脈瘤では過去に死亡例の文献報告は認められなかったが、個別症例の集積であるた



図 3 胸部造影 CT (第 17 病日)。右肺動脈下葉枝に肺動脈仮性動脈瘤が認められる (赤矢印)。

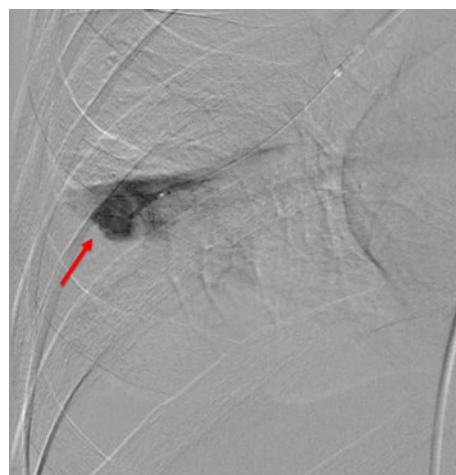


図 4 肺動脈造影像。右肺動脈 A8b 末梢枝に仮性動脈瘤が認められる (赤矢印)。

表 2 感染性肺動脈仮性動脈瘤を呈した成人例

著者	年齢	性別	原因疾患	治療	転帰	引用
原	27	女	感染性心内膜炎	抗菌薬	軽快	感染症学雑誌 76 (2002)
嵯峨	78	男	感染性心内膜炎	抗菌薬	軽快	秋田県農村医学会雑誌 48 (2003)
江原	50	女	感染性心内膜炎	抗菌薬	軽快	第 524 回日本内科学会関東地方会
小林	53	男	肺膿瘍	コイル塞栓	軽快	日呼吸会誌 45 (2007)
高山	73	男	閉塞性肺炎	コイル塞栓	軽快	日気管食道会報 59 (2008)
眞田	59	女	感染性心内膜炎	コイル塞栓	軽快	第 179 回呼吸器学会関東地方会 (2008)
Haranaga	90	男	肺膿瘍	抗菌薬	軽快	Intern Med 48 (2009)
猿木	48	男	細菌性肺炎	抗菌薬	軽快	日内会誌 98 (2009)
上田	65	男	肺膿瘍	外科的切除	軽快	第 53 回日本呼吸器学会学術講演会 (2013)
工藤	51	男	肺膿瘍	外科的切除	軽快	日呼外会誌 27 (2013)
Morinaga	63	男	肺膿瘍	外科的切除	軽快	Int J Infect Dis 17 (2013)

め出版バイアスの可能性があり、また低圧系（肺循環系）からの出血であったとしても Monchik らの検討から致命的となる可能性は十分に考慮され、積極的な精査および治療（塞栓術・外科的切除術）を検討する必要があると考えられた。

Lemierre 症候群に感染性肺動脈仮性動脈瘤を合併した成人例は検索しえたかぎりでは認められず、貴重な経験と考え報告した。

本論文の要旨は第 194 回日本呼吸器学会関東地方会（2011 年 5 月、東京）で発表した。

著者の COI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- 1) Lemierre A. On certain septicaemia due to anaerobic organisms. *Lancet* 1936; 28: 701-3.
- 2) Riordan T, et al. Lemierre's syndrome: more than a historical curiosa. *Postgrad Med J* 2004; 80: 328-34.
- 3) Wright WF, et al. Lemierre syndrome. *South Med J* 2012; 105: 283-8.
- 4) Ramirez S, et al. Increased diagnosis of Lemierre syndrome and other *Fusobacterium necrophorum* infections at a Children's Hospital. *Pediatrics* 2003; 112: e380.
- 5) Nguyen ET, et al. Pulmonary artery aneurysms and pseudoaneurysms in adults: findings at CT and radiography. *AJR Am J Roentgenol* 2007; 188: W126-134.
- 6) Sbano H, et al. Peripheral pulmonary artery pseudoaneurysms and massive hemoptysis. *AJR Am J Roentgenol* 2005; 184: 1253-9.
- 7) Sakuma M, et al. Peripheral pulmonary artery aneurysms in patients with pulmonary artery hypertension. *Intern Med* 2007; 46: 979-84.
- 8) Monchik J, et al. Solitary aneurysm of the middle lobe artery. A case report and review of solitary peripheral pulmonary artery aneurysms. *Ann Thoracic Surg* 1974; 17: 496-503.

Abstract

An infectious pulmonary pseudoaneurysm resulting from Lemierre syndrome: A case report

Yuta Adachi, Takashi Yamana, Hiroaki Saito, Takaaki Yamashita,
Kazuhito Saito and Yoko Shinohara

Department of Respiratory Medicine, Tsuchiura Kyodo General Hospital

A 28-year-old previously healthy male was admitted to our hospital because of severe pharyngotonsillitis with septic pulmonary emboli; he was diagnosed with Lemierre syndrome. Although effective antibiotics were administered, pulmonary lesions worsened, resulting in massive hemoptysis, which was not fully relieved by bronchial artery embolization. Pulmonary artery angiography revealed a right pulmonary artery pseudoaneurysm. Embolization of this aneurysm completely resolved his hemoptysis. Infectious pulmonary artery pseudoaneurysms are rare but can be associated with fatal outcomes. In a case of hemoptysis secondary to bacterial infection, pulmonary artery pseudoaneurysms are to be considered.