

●症 例

気管瘻孔を伴う甲状腺膿瘍と多発縦隔膿瘍を合併した骨髓異形成症候群の1例

関 智行 野原 瑛里 谷 直樹 鈴木 進子

要旨：甲状腺感染症は解剖学的異常や免疫不全がリスク因子となり、前頸部痛などの局所症状を伴う疾患である。今回、甲状腺膿瘍が気管瘻孔を形成し、局所症状を伴わない、骨髓異形成症候群の症例を経験した。骨髓異形成症候群が甲状腺感染症のリスク因子となった可能性がある。また、甲状腺膿瘍が気管瘻孔を形成すると内瘻化されて膿瘍による局所症状が目立たず診断が難しくなる。甲状腺感染症のリスクを評価し、本症例のような画像所見を見逃さないことが重要である。

キーワード：甲状腺膿瘍, 気管瘻孔, 多発縦隔膿瘍, 骨髓異形成症候群, 免疫不全

Thyroid abscess, Tracheal fistula, Multiple mediastinal abscesses,
Myelodysplastic syndrome (MDS), Immunodeficiency

緒 言

甲状腺感染症が稀な理由として、甲状腺は高濃度ヨードを含むこと、血流とリンパ流が豊富であること、被膜に覆われ他臓器との連続を認めないことなどが挙げられている¹⁾²⁾。甲状腺感染症が咽頭梨状窩瘻や免疫不全に生じた報告がある³⁾⁴⁾が、骨髓異形成症候群 (myelodysplastic syndrome : MDS) に甲状腺膿瘍が気管瘻孔を形成した報告はない。今回我々はMDS患者に発症した気管瘻孔を伴う甲状腺膿瘍と多発縦隔膿瘍を経験したため報告する。

症 例

患者：57歳，女性。

既往歴：尋常性乾癬（20XX-5年），肺炎球菌肺炎（20XX-4年）。MDS（20XX-4年に診断され血液内科通院中）。

家族歴：特記事項なし。

喫煙歴：20歳から喫煙（10本/日）。

飲酒歴：なし。

現病歴：20XX-2年7月に咳嗽の精査で撮影したCTで上葉優位に多発嚢胞と気腫を認め、当科を受診した。外科的肺生検の同意が得られず、20XX-1年10月に気管

支鏡検査を施行したが診断に至らず、経過観察としていた。同年12月中旬より肛門痛があり、12月末から湿性咳嗽と発熱を自覚したため、近医を受診しクラリスロマイシン (clarithromycin : CAM) を処方された。その後20XX年1月6日、7日にセファゾリン (cefazolin : CEZ) 1gの点滴を受けたが、症状が改善しないため1月8日に当院紹介となった。

入院時現症：体温37.5℃，血圧126/67mmHg，脈拍123回/分，呼吸数24回/分，SpO₂ 69%（室内気），オキシマスク™で2L/分を開始し98%。身長156cm，体重40kg，BMI 16.4と痩せあり。呼吸音は両背側でcracklesを聴取，心雑音なし。腹部は平坦，軟。直腸診で肛門9時方向に硬結と圧痛を伴う自壊した深掘れ潰瘍を認めた。皮膚や口腔内に特記すべき異常はなく，乾癬を疑う皮疹は認めなかった。

入院時検査所見 (Table 1)：血液検査で白血球数が48,870/μLと前回20XX-1年12月4日21,290/μLに比べ上昇しており，炎症反応も高値であった。

入院時画像所見 (Fig. 1A~C)：胸部CTでは既存の気腫と多発嚢胞に加えて両肺野に結節影が複数箇所出現していた。

入院後経過：外科診察では肛門周囲膿瘍は自壊排膿していたため，排膿処置は不要であった。細菌性肺炎と肛門周囲膿瘍を疑い，メロペネム (meropenem : MEPM) 1g q8hで治療を開始した。結節影に対して真菌感染を疑い，入院2日目に気管支鏡検査を施行した。咳嗽が強く脱抑制もあり十分な観察が困難であったが，気管近位部1時方向と9時方向に2ヶ所瘻孔があり (Fig. 2A)，また気管内腔に複数の隆起性病変を認めた (Fig. 3A~D)。

連絡先：関 智行

〒391-8503 長野県茅野市玉川4300

諏訪中央病院呼吸器内科

(E-mail: kyokui080203@gmail.com)

(Received 31 Jan 2021/Accepted 19 May 2021)

Table 1 Laboratory findings on admission

Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	48,870/μL	AST	37 U/L	ESR	56 mm/h
Neut	93.5%	ALT	13 U/L	CRP	10.81 mg/dL
Lymp	4.8%	LDH	955 U/L	KL-6	579 U/mL
Mono	1.2%	CPK	10 U/L	SP-D	40.3 ng/mL
Eos	0%	ALP	508 U/L	β-D-glucan	12.7 pg/mL
Ba	0%	γ-GTP	61 U/L	IGRA	(-)
RBC	280 × 10 ⁴ /μL	T-bil	0.98 mg/dL	<i>Aspergillus</i> antigen	0.1
Hb	7.1 g/dL	Alb	2.2 g/dL	<i>Aspergillus</i> antibody	less than 4
Ht	22.9%	TP	5.1 g/dL	<i>Cryptococcus</i> antigen	(-)
Plt	29 × 10 ⁴ /μL	Na	135.5 mmol/L	Bacteriological examination	
Coagulation		K	3.5 mmol/L	Mycobacterial sputum smear	(-)
PT-INR	1.21	Ca	7.5 mg/dL	TB-LAMP (sputum)	(-)
APTT	36.3 sec	Cl	99 mmol/L	MAC-PCR (sputum)	(-)
D-dimer	5.2 μg/mL	BUN	10.3 mg/dL	Mycobacterial sputum culture	(-)
		Cre	0.5 mg/dL	Sputum culture	normal flora
				Perianal abscess smear culture	
				<i>Escherichia coli</i> (ESBL)	few
				<i>Staphylococcus epidermis</i>	few
				<i>Bacteroides uniformis</i>	(3+)
				<i>Bacteroides fragilis</i>	(3+)

IGRA: interferon-γ release assay, MAC: *Mycobacterium avium* complex, ESBL: extended-spectrum β-lactamases.

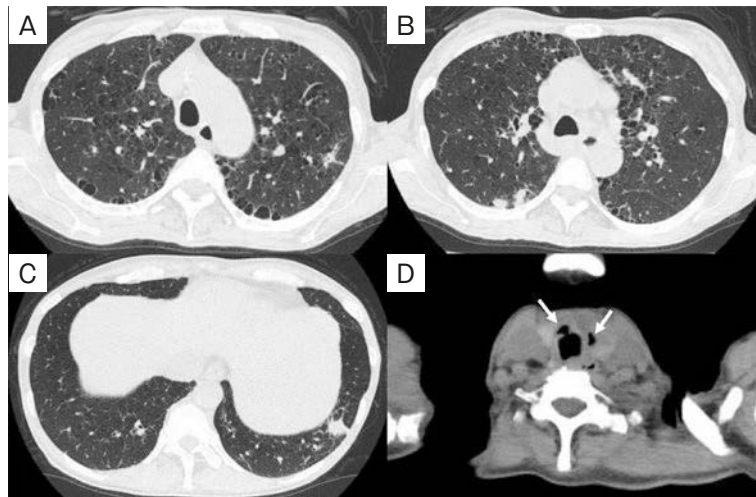


Fig. 1 Chest CT findings. CT on admission showed multiple cysts and emphysema bilaterally in the upper lungs (A), nodules in the right upper lung and the left lower lung (B, C), and air in the thyroid isthmus and left lobe (arrows) (D).

入院時の単純CTを見直すと、甲状腺峡部と左葉内に空気を伴う低吸収域を認めた (Fig. 1D)。改めて頸部を診察したが、甲状腺左葉がわずかに腫脹しているのみであった。追加した造影CTでは甲状腺峡部と左葉に造影効果のない低吸収域があり、左葉深部の気管は圧排され変形していた (Fig. 2B, C)。また、気管周囲にリング状造影効果を伴う低濃度域が複数あり、気管支鏡で確認した隆起性病変と一致していた (Fig. 3E~H)。甲状腺超音波検

査でも同様の所見が確認できた (Fig. 2D)。以上から2ヶ所の気管瘻孔を伴う甲状腺膿瘍と多発縦隔膿瘍と診断した。呼吸器外科、耳鼻咽喉科、甲状腺科と協議し甲状腺膿瘍はすでに気管内に排膿していること、全身状態が悪くないことから追加の外科的ドレナージは行わず抗生剤治療を継続する方針とし、レボフロキサシン (levofloxacin: LVFX) を追加した。肺野の結節影に対して真菌感染症を考慮しミカファンギン (micafungin: MCFG) を

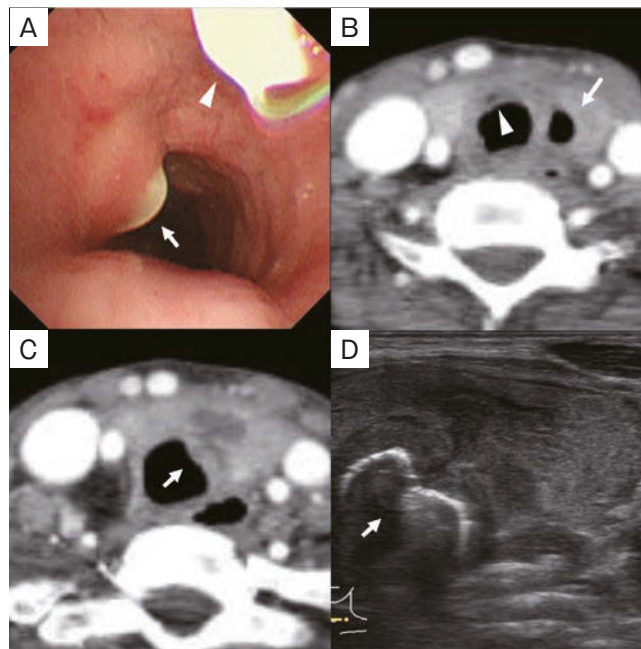


Fig. 2 Thyroid abscesses complicated by tracheal fistulae. (A) Bronchoscopic findings showed two tracheal fistulae (arrowhead and arrow). (B, C) Contrast-enhanced CT showed a low-density area in the thyroid isthmus and left lobe with air and deformed trachea. The arrowhead shows an abscess in the thyroid isthmus and the arrows show an abscess in the left thyroid lobe. (D) Ultrasonography findings showed a low echoic area (19×13×9 mm) in the left thyroid lobe with a deformed trachea (arrow).

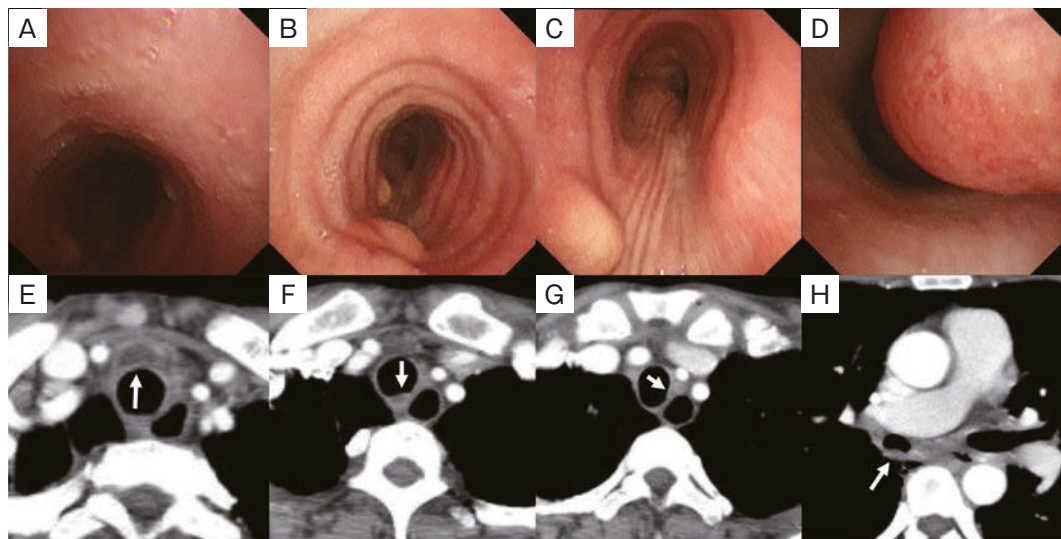


Fig. 3 Multiple mediastinal abscesses. (A-D) Bronchoscopic findings showed multiple protruding lesions in the trachea and right bronchus. (E-H) Contrast-enhanced CT showed a ring-like enhanced low-density area around the trachea and right bronchus (arrows).

追加した。入院3日目に解熱したにもかかわらず洞性頰脈が続いたため甲状腺ホルモン検査を行ったところ、TSH 0.0040 μ IU/mL, FT₄ 2.93 ng/dL, FT₃ 4.98 pg/mLと破壊性甲状腺炎を合併していることが判明し、プロプラ

ノロール (propranolol) 錠30mg/日の内服を行った。入院時からの臨床経過をFig. 4に示す。入院7日目に行った気管支鏡検査では依然2ヶ所の気管瘻孔と気管隆起は残存していた。 β -D-glucanは正常で各種培養結果で真菌が

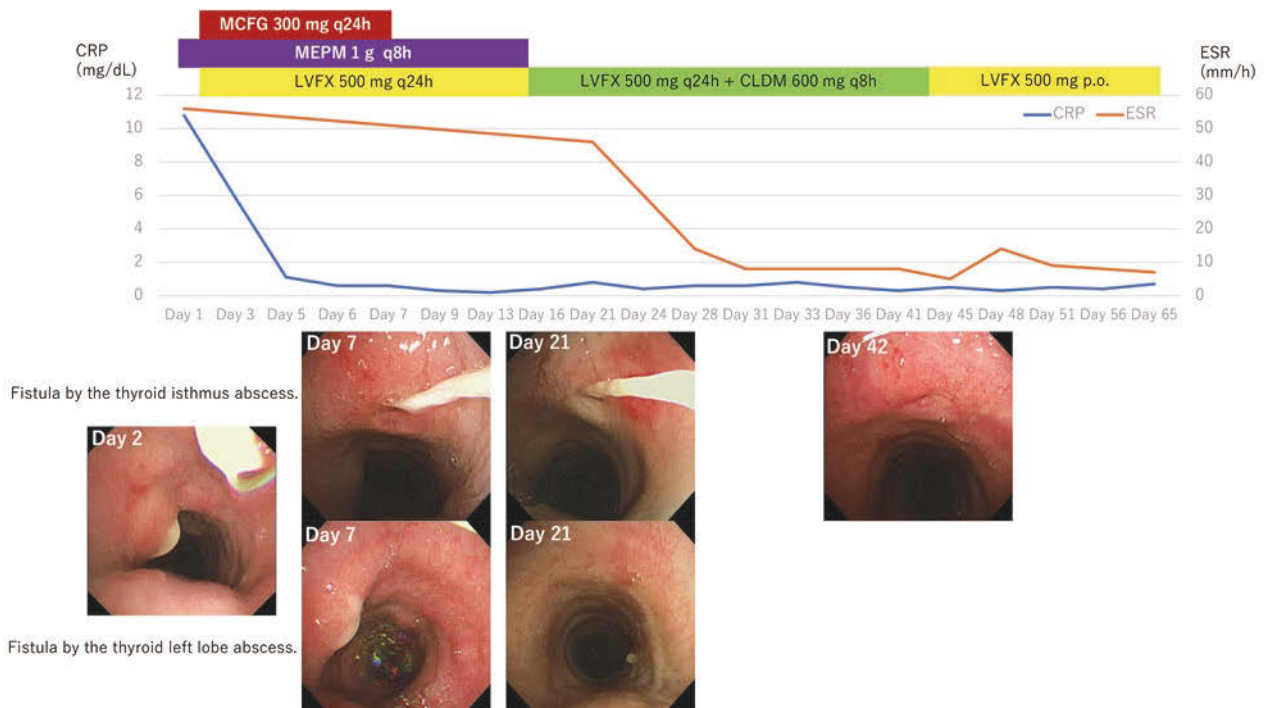


Fig. 4 Clinical course. Bronchoscopic findings showed two tracheal fistulae by the thyroid abscesses (isthmus and left lobe). The left thyroid lobe fistula had disappeared on day 21. The isthmus fistula had disappeared on day 42. MCFG: mifampridine, MEPM: meropenem, LVFX: levofloxacin, CLDM: clindamycin, p.o.: per os.

否定されたため、MCFGは1週間で終了した。また、肛門周囲膿瘍部の検体から extended-spectrum β -lactamases (ESBL) 産生大腸菌や *Bacteroides* 属が検出され、同部からの菌血症が否定できず、MEPMは2週間継続した。血液培養や喀痰培養、気管支鏡検体の培養検査を複数回提出したが、抗酸菌を含めすべて陰性であり起病因菌の同定には至らなかった。これは前医で抗生剤が開始されていたことが影響していると考えられた。特に菌血症から膿瘍形成をきたしやすい黄色ブドウ球菌が培養採取時に陰性化した可能性はある。入院15日目に行った造影CTでは縦隔膿瘍は消失したが、甲状腺膿瘍は残存していたため、LVFXとクリンダマイシン (clindamycin: CLDM) へ変更した。入院21日目の気管支鏡検査では甲状腺左葉内膿瘍からの気管瘻孔と気管隆起は消失していたが、甲状腺峡部膿瘍からの気管瘻孔は残存していた。抗生剤治療を継続し入院42日目の気管支鏡検査で気管瘻孔の消失を確認できたが、超音波検査で膿瘍の残存が否定できず、LVFX 500mg/日内服へ変更した。退院後の65日目に抗生剤を終了し、以後再発は認めなかった。

考 察

本症例ではMDSが甲状腺膿瘍のリスク因子になった可能性があること、また、甲状腺膿瘍が気管瘻孔を形成することがあり、その場合局所症状をきたさず診断が難し

いことが示唆された。

MDSは甲状腺感染症のリスク因子になり得る。甲状腺感染症のリスク因子としては、咽頭梨状窩瘻や甲状腺腫などの解剖学的異常や、後天性免疫不全症候群 (acquired immunodeficiency syndrome: AIDS) や悪性リンパ腫などの免疫不全が報告されている⁵⁾。本症例では超音波検査や造影CTでは甲状腺に明らかな解剖学的な異常は認めなかった。しかし、小児で多い咽頭梨状窩瘻は稀ではあるが成人例での報告もある⁶⁾⁷⁾ ため、本症例でも精査すべきであった。ただ、咽頭梨状窩瘻が原因であれば再発することが多いが、本症例では以後存命した約1年の間再燃しなかったことから否定的と考えた。また、MDSに合併する感染症は細菌感染が多く、その主要なリスク因子は好中球減少であるが、それ以外にも好中球の機能障害や他の免疫細胞の機能障害なども原因になると報告されている^{8)~10)}。本症例は revised-International Prognostic Scoring System (IPSS-R) 予後因子スコアは3点と low リスクであり、末梢血白血球数は治療後も2万~3万/ μ L 台と増加しており、好中球減少は一貫してなかったことから、好中球の機能異常やその他の免疫機能障害が原因であった可能性があると考えられた。

甲状腺膿瘍が気管瘻孔を形成すると内瘻化されて膿瘍による局所症状が目立たず診断が難しい。化膿性甲状腺炎の報告では前頸部痛や甲状腺の圧痛、同部の発赤など

局所所見が多いことがわかっている¹¹⁾。本症例は気管瘻孔を形成したため膿瘍が気管内に排膿され、前頸部痛などの局所所見が目立たなかった可能性が高く、診断が遅れた。湿性咳嗽と肺の結節影については、甲状腺膿瘍が気管内に垂れ込んだ可能性や敗血症性肺塞栓症によるものと考えられた。甲状腺膿瘍が気管瘻孔を形成することは稀だが、肺炎に類似した症状を起し得るため注意が必要である。寄生虫による甲状腺感染症が気管に瘻孔を形成した報告はある¹²⁾が、細菌感染に合併した報告は1例のみで¹³⁾、内視鏡所見が掲載された報告はなかった。

本症例ではMDSが甲状腺感染症のリスク因子になった可能性があること、また気管瘻孔を合併すると症状が非典型的となることが示唆された。甲状腺感染症のリスクを適切に評価して、本症例のような画像所見を見逃さないことが重要である。

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

引用文献

- 1) Pearce EN, et al. Thyroiditis. *N Engl J Med* 2003; 348: 2646-55.
- 2) Farwell AP. Infectious thyroiditis. In: Braverman LE, et al, ed. *Werner & Ingbar's the Thyroid: a Fundamental and Clinical Text*. 8th ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins. 2000; 1044-50.
- 3) Yolmo D, et al. Retrospective case review of pyriform sinus fistulae of third branchial arch origin

commonly presenting as acute suppurative thyroiditis in children. *J Laryngol Otol* 2012; 126: 737-42.

- 4) Jinno S, et al. *Coccidioides* thyroiditis in an HIV-infected patient. *J Clin Microbiol* 2012; 50: 2535-7.
- 5) Yu EH, et al. Suppurative *Acinetobacter baumannii* thyroiditis with bacteremic pneumonia: case report and review. *Clin Infect Dis* 1998; 27: 1286-90.
- 6) 佐藤克郎, 他. 下咽頭梨状陥凹瘻手術症例の検討. *日耳鼻会報* 2007; 110: 623-8.
- 7) 上野貴史, 他. 成人男性に発症した下咽頭梨状窩瘻による急性化膿性甲状腺炎の1例. *日臨外医学会誌* 1993; 54: 1766-70.
- 8) Leone G, et al. Infections in myelodysplastic syndrome in relation to stage and therapy. *Mediterr J Hematol Infect Dis* 2018; 10: e2018039.
- 9) Toma A, et al. Infections in myelodysplastic syndromes. *Haematologica* 2012; 97: 1459-70.
- 10) Fianchi L, et al. Impaired bactericidal and fungicidal activities of neutrophils in patients with myelodysplastic syndrome. *Leuk Res* 2012; 36: 331-3.
- 11) Berger SA, et al. Infectious diseases of the thyroid gland. *Rev Infect Dis* 1983; 5: 108-22.
- 12) Jiang T, et al. Hydatid cyst of the thyroid gland with tracheal fistula: a case report and review of the literature. *Exp Ther Med* 2019; 18: 573-9.
- 13) Szymanski J. A case of acute suppurative inflammation of the thyroid gland complicated by a tracheal fistula. *Ann Otolaryngol* 1949; 66: 477-80 (in French).

Abstract

A case of thyroid abscesses complicated by tracheal fistulae and multiple mediastinal abscesses with myelodysplastic syndrome

Tomoyuki Seki, Eri Nohara, Naoki Tani and Shinko Suzuki
Department of Respiratory Medicine, Suwa Central Hospital

Herein, we report a rare case of thyroid abscesses complicated by tracheal fistulae and multiple mediastinal abscesses in a patient with myelodysplastic syndrome. A 57-year-old female patient diagnosed with myelodysplastic syndrome three years earlier developed cough and fever and received antibiotic treatment in another clinic one week earlier; however, her condition had not improved, and she was referred to our hospital. Chest computed tomography (CT) showed multiple cysts and emphysema in bilateral upper lungs, nodules in the right upper and left lower lungs, and air in the thyroid isthmus and left lobe. Bronchoscopy revealed two tracheal fistulae and multiple protruding lesions, and contrast-enhanced CT revealed thyroid abscesses with air and multiple mediastinal abscesses around the trachea. The patient also had destructive thyroiditis. Although the causative agent could not be identified despite various culture tests, long-term antibiotic treatment led to improvement in her condition and all abscesses and fistulae disappeared.