

●画像診断

画像所見で後縦隔腫瘍との鑑別が困難であったウエステルマン肺吸虫症の1例

赤池 公孝^a 岡本真一郎^a 佐伯 祥^a
 一安 秀範^a 河中 功一^b 坂上 拓郎^a

要旨：症例は59歳男性。健康診断で胸部異常陰影が認められたため前医を受診し、後縦隔腫瘍を疑われ当院を紹介受診した。当院受診時、自覚症状はなかったが、造影CTとMRIで右肺尖部背側胸膜に接し最上肋間動脈混入を伴う腫瘤影が認められた。同部位のCTガイド下針生検を行い、黄色肉芽腫様炎症反応を背景に虫卵を検出した。血清抗体検査を行いウエステルマン肺吸虫症と診断した。後縦隔腫瘍所見と類似したウエステルマン肺吸虫症の報告は稀で貴重な症例と考えたので報告する。

キーワード：ウエステルマン肺吸虫症，後縦隔腫瘍

Paragonimiasis westermani, Posterior mediastinal tumor

緒言

ウエステルマン肺吸虫症は調理不十分の淡水産のカニや猪肉などから人へ感染する寄生虫症である。またウエステルマン肺吸虫症の画像所見は肺内の腫瘤影の他に浸潤陰影や孤立性結節影、胸水貯留など多彩な陰影を呈するため、鑑別に苦慮することが多い^{1)~5)}。

今回、我々は造影CTおよびMRIで後縦隔腫瘍の所見を呈するウエステルマン肺吸虫症を経験したので報告する。

症例

患者：59歳，男性。

主訴：特になし（胸部異常陰影）。

既往歴：高血圧症。

喫煙歴：現喫煙者 20本/日×39年間。

職業歴：警備会社社員。

現病歴：20XX年9月の健康診断の胸部単純X線写真で、前年には指摘しなかった新規の胸部異常陰影を認めため前医を受診した。CTで後縦隔腫瘍を疑われ20XX+1年1月に当院紹介となった。

入院時身体所見：身長175cm，体重79kg，体温35.9℃，脈拍75回/min・整，血圧113/74mmHg。経皮的動脈血

酸素飽和度（SpO₂）98%（室内気），意識清明，呼吸音は清，表在リンパ節は触知せず，四肢に浮腫や皮疹はなく，自覚症状も認めなかった。

初診時検査所見（Table 1）：血液生化学検査では末梢血好酸球（Eos）の上昇を認めたのみで，その他に悪性疾患を示唆する所見はなく，β-D-グルカンやT-SPOT.TBも陰性であった。

画像所見：入院時の胸部造影CTでは右肺尖部の背側胸膜に接し最上肋間動脈混入を伴う52×12×50mmの腫瘤影を認めた（Fig. 1a）。また胸部MRIではT1強調画像で低信号を（Fig. 1b），T2強調画像で不均一な高信号を呈し（Fig. 1c），造影MRIでは腫瘤影は内部が不均一に造影効果を伴っていた（Fig. 1d）。

臨床経過：画像所見より神経原性腫瘍など後縦隔腫瘍を疑い確定診断目的で，腫瘤性病変に対しCTガイド下針生検を施行した。組織診では好酸球を伴わない炎症細胞の浸潤や線維組織など黄色肉芽腫様の炎症性変化を背景に，虫卵を検出した（Fig. 2）。便検査では虫卵や虫体の検出はなかったが，環境歴の聴取で20XX-2年・20XX-4年に自宅で調理を行った川ガニの摂取歴があったため，寄生虫抗体スクリーニング検査の追加検査を行い，ウエステルマン肺吸虫・宮崎肺吸虫がclass 2と陽性を示した。後日microplate ELISA法による半定量的評価を行い*Paragonimus westermani*で高い抗体価を示したためウエステルマン肺吸虫症と診断した（Fig. 3）。

治療として，プラジカンテル（praziquantel）75mg/kg/日，3日間投与を行った。治療開始4ヶ月後には抗体価の低下と，腫瘤影の縮小を認めた（Fig. 1e）。

連絡先：赤池 公孝

〒860-8556 熊本県熊本市中央区本荘1-1-1

^a熊本大学病院呼吸器内科

^b同 画像診断科・治療科

(E-mail: demio0601@gmail.com)

(Received 28 Jul 2021/Accepted 8 Oct 2021)

Table 1 Laboratory data

Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	6,600 / μ L	TP	7.6 g/dL	CRP	0.21 mg/dL
Neut	58 %	Alb	4.5 g/dL	IgG	1,218 mg/dL
Lym	28.3 %	Na	140 mmol/L	IgG4	94.1 mg/dL
Mo	5.8 %	K	4.7 mmol/L	IgE	70 IU/mL
Baso	0.6 %	Cl	104 mmol/L	Anti-AChR ab	<0.3 nmol/L
Eos	7.3 %	Ca	9.7 mg/dL	CEA	2.1 ng/mL
RBC	467 $\times 10^4$ / μ L	BUN	12.9 mg/dL	CYFRA	1.0 ng/mL
Hb	15.5 g/dL	Cr	0.94 mg/dL	ProGRP	44.4 pg/mL
Ht	43.7 %	T-bil	0.8 mg/dL	NSE	11.2 ng/mL
Plt	26.4 $\times 10^4$ / μ L	AST	26 U/L	sIL-2R	377 U/mL
		ALT	24 U/L	AFP	4.5 ng/mL
		LDH	213 U/L		
		ALP	232 U/L	Infection	
		γ -GTP	34 U/L	β -D-glucan	5 pg/mL
		CK	89 U/L	<i>Aspergillus</i> ag	<0.1
		Glu	101 mg/dL	<i>Cryptococcus</i> ag	(-)
		HbA1c	5.8 %	T-SPOT.TB	(-)

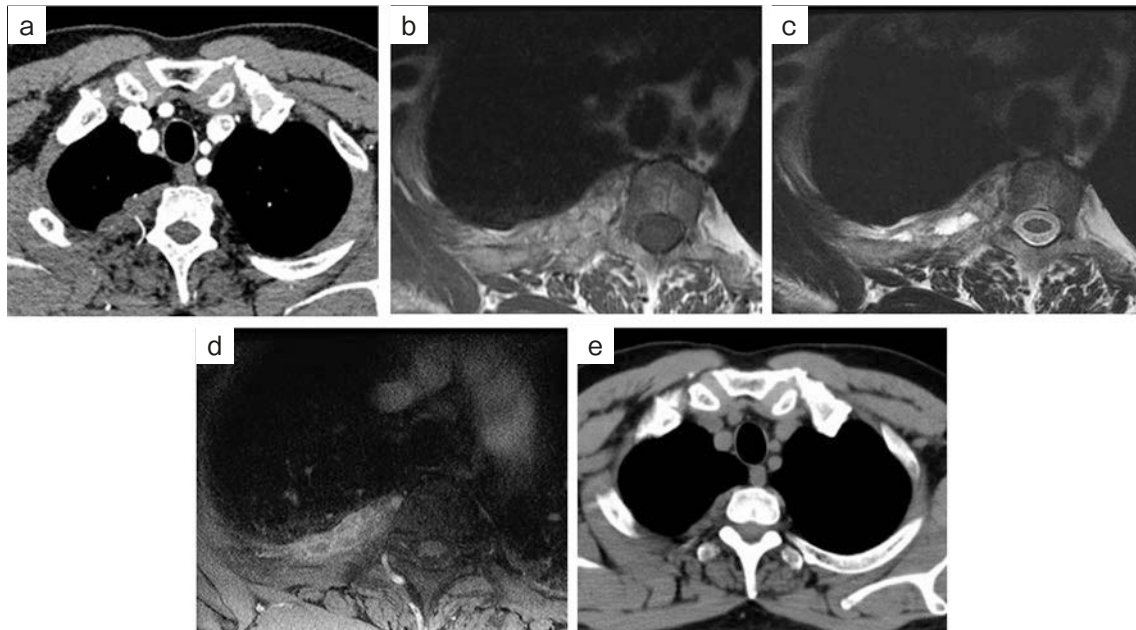


Fig. 1 Imaging findings. (a) Contrast-enhanced CT of the chest showing the posterior mediastinal tumor with supreme intercostal artery invasion at the apex of the chest cavity. (b) Chest magnetic resonance imaging (MRI) tumor findings showing the low-intensity area on T1-weighted images and (c) area of partial high intensity on T2-weighted images. (d) Gd-DTPA-enhanced T1-weighted MRI showing gradual enhancement of the mass. (e) Unenhanced chest CT finding showing the posterior mediastinal tumor shrinkage at 4 months after administration of praziquantel (75 mg/kg for 3 days).

考 察

ウエステルマン肺吸虫症は西日本地域が流行地の寄生虫感染症で、第2中間宿主であるモクズガニ・サワガニなどの淡水産のカニや、待機宿主である猪などを加熱不十分な状態で摂取することで感染する。

過去の報告では、本疾患において臨床所見および画像所見に基づく初期の第一鑑別疾患では肺癌や肺結核が疑われることが多く、寄生虫感染と判断されるのは11%にすぎない⁶⁾。加えてImらは、ウエステルマン肺吸虫症の肺病変の所見として、肺浸潤陰影や肺結節影が多くを占める他に嚢胞や線状陰影など多彩な肺陰影や、肺実質外

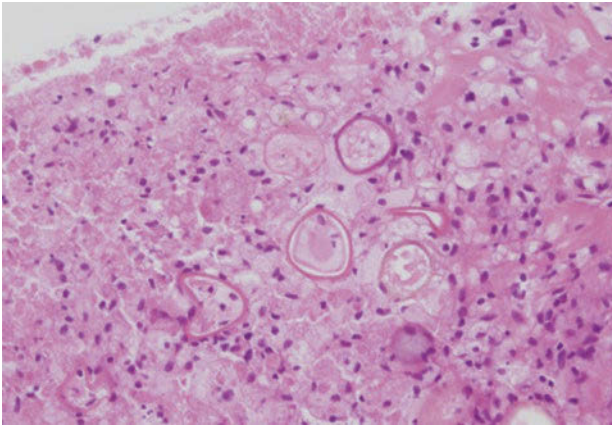


Fig. 2 Histological findings from the CT-guided percutaneous needle biopsy of the posterior mediastinal tumor showing xanthogranulomatous tissue containing parasite eggs without eosinophils (hematoxylin-eosin staining, $\times 200$).

では胸水や気胸に加え胸膜肥厚も報告している³⁾。この多彩な画像所見の理由は、感染早期では気胸や胸水、感染後4週以降に肺野の浸潤影、腫瘤影、空洞陰影が生じやすいなど、感染後のウエステルマン肺吸虫の腸管壁から腹腔、胸腔、肺へ移行する過程が影響するとの報告がある⁷⁾。本症例の胸部造影CTでは右肺尖部の後縦隔に最上肋間動脈の混入を伴う腫瘤影を認めた。過去の報告ではウエステルマン肺吸虫症の肺実質の腫瘤影は造影効果を示すことが報告されていた³⁾⁸⁾が、我々が知る限り肋間動脈の混入を示した後縦隔腫瘤影のウエステルマン肺吸虫症の報告はなく本症例が初めてであった。この現象の要因として川ガニ摂取後、数年間のウエステルマン肺吸虫症罹患により長期間にわたり肉芽腫内の血管内皮細胞増殖因子による血管新生促進が影響し⁹⁾、肋間動脈の混入が生じた可能性が示唆された。

また過去の報告では後縦隔腫瘍は神経鞘腫など神経原性腫瘍が多くを占め、そのMRI所見はT1およびT2強調画像でそれぞれ低信号および高信号を示し、造影MRI所見では造影効果を伴うことが多い¹⁰⁾¹¹⁾。本症例におけるMRIでも神経原性腫瘍と同様の所見を呈した。この所見は寄生虫感染によって宿主による虫卵周囲の黄色肉芽腫様の炎症反応が影響していた可能性が示唆され、MRI単独での神経原性腫瘍とウエステルマン肺吸虫症との鑑別は困難と考えられた。

今回、我々は画像所見で後縦隔腫瘍の所見を呈するウエステルマン肺吸虫症の1例を経験した。本症例のように寄生虫感染症は多彩な画像所見を呈することがあり、腫瘤性病変を認めた場合、寄生虫感染症も考慮する必要があると考えられた。

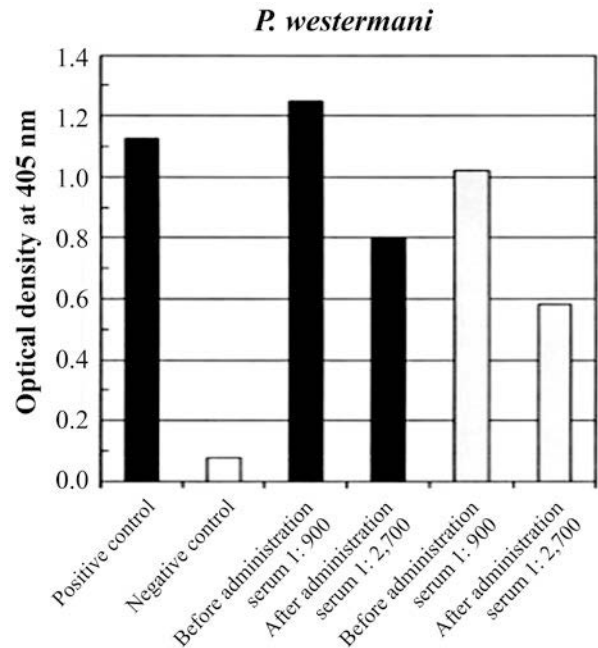


Fig. 3 Serum antibody titers against *Paragonimus westermani* using microplate enzyme-linked immunosorbent assay (ELISA) showing a high concentration before administration of praziquantel and a decrease in concentration 4 months after administration.

本報告の要旨は、第79回日本呼吸器学会・日本結核病学会九州支部秋季学術講演会（2017年9月、大分）で発表した。

謝辞：寄生虫抗体価測定および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。

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) Xia Y, et al. Characteristic CT and MR imaging findings of cerebral paragonimiasis. J Neuroradiol 2016; 43: 200-6.
- 2) Nakagawa Y, et al. An outbreak of *Paragonimus westermani* infection among Cambodian technical intern trainees in Japan, exhibiting various extrapulmonary lesions. Parasitol Int 2021; 81: 102279.
- 3) Im JG, et al. Pleuropulmonary paragonimiasis: radiologic findings in 71 patients. AJR Am J Roentgenol 1992; 159: 39-43.
- 4) Henry TS, et al. Chest CT features of North American paragonimiasis. AJR Am J Roentgenol 2012; 198: 1076-83.

- 5) 床島眞紀, 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 : 910-4.
- 6) Song JU, et al. Pulmonary paragonimiasis mimicking lung cancer in a tertiary referral centre in Korea. Int J Tuberc Lung Dis 2011; 15: 674-9.
- 7) Im JG, et al. Pulmonary paragonimiasis: clinical and experimental studies. Radiographics 1993; 13: 575-86.
- 8) Kim EA, et al. Imaging findings of hepatic paragonimiasis: a case report. J Korean Med Sci 2004; 19: 759-62.
- 9) Matty MA, et al. Adventures within the speckled band: heterogeneity, angiogenesis, and balanced inflammation in the tuberculous granuloma. Immunol Rev 2015; 264: 276-87.
- 10) Sakai F, et al. Intrathoracic neurogenic tumors: MR-pathologic correlation. AJR Am J Roentgenol 1992; 159: 279-83.
- 11) 松本博文, 他. 神経鞘腫診断におけるMRIの有用性. 整外と災外 1994 ; 43 : 634-8.

Abstract

A case of *Paragonimiasis westermani* mimicking a posterior mediastinal tumor on CT and MRI imaging findings

Kimitaka Akaike^a, Shinichiro Okamoto^a, Sho Saeki^a,
Hidenori Ichiyasu^a, Koichi Kawanaka^b and Takuro Sakagami^a

^aDepartment of Respiratory Medicine, Kumamoto University Hospital

^bDepartment of Diagnostic Radiology, Kumamoto University Hospital

A 59-year-old man was referred to our hospital due to an abnormal thoracic shadow. Contrast-enhanced chest computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging revealed a posterior mediastinal tumor with supreme intercostal artery invasion at the apex of the chest cavity. Based on these imaging results, a tumor of neurogenic origin was suspected. Tissue specimens collected by CT-guided percutaneous needle biopsy revealed xanthogranulomatous tissue containing parasite eggs. Since the patient had a history of ingestion of Japanese freshwater crabs which are known as an intermediate host, we performed a serum antibody test against *Paragonimus westermani* using microplate enzyme-linked immunosorbent assay (ELISA), which was positive. Finally, *Paragonimiasis westermani* was diagnosed. Four months after administration of praziquantel, the posterior mediastinal tumor had shrunk and *P. westermani*-specific antibody titers had decreased.