

●症 例

左前胸部の腫脹で発見された胸壁穿破を伴う肺放線菌症の1例

三田 明音 長井 桂 前田由起子
水島 亜玲 谷口菜津子 原田 敏之

要旨：48歳の男性。左前胸部に発赤・腫脹が出現し、左上肢挙上が困難となったが経過観察。精査目的に3ヶ月後当科を紹介初診。胸部CTで左上葉に腫瘤影を認め、左大胸筋へと連続し胸腔外まで進展、心嚢液・両側胸水も認めた。気管支洗浄液・喀痰・血液培養では有意菌を認めなかったが、左前胸部病変の皮膚生検で乳白色の膿汁が排出され、膿汁の細菌培養から *Actinomyces* 属と *Fusobacterium* 属が検出された。*Fusobacterium* 属と共感染した肺放線菌症および胸壁穿破と診断、スルタミシリン (sultamicillin : SBTPC) 投与で改善した。

キーワード：放線菌, 放線菌症, フソバクテリウム, 胸壁穿破, 筋肉内膿瘍

Actinomyces, *Actinomycosis*, *Fusobacterium*, Chest wall invasion, Intramuscular abscess

緒 言

放線菌症は、ヒトの口腔内・消化管・女性生殖器に常在する嫌気性グラム陽性桿菌の一種である *Actinomyces* 属の感染により発症する慢性化膿性疾患である。放線菌症の特徴として隣接臓器への浸潤傾向が強いことが挙げられており、特に肺放線菌症の場合は胸壁への浸潤を伴うことがある。

今回我々は、*Fusobacterium* 属と共感染した肺放線菌症により胸壁穿破および筋肉内膿瘍の形成に至った1例を経験したため報告する。

症 例

患者：48歳、男性。

主訴：左前胸部の腫脹。

既往歴：40歳 歯槽膿漏のため上顎歯が自然脱落し、現在は義歯を使用している。胸部に受傷歴なし。その他特記事項なし。

生活歴：喫煙歴20本/日×30年、飲酒は機会飲酒、職業は大工。アレルギーなし。粉塵吸入歴なし。ペット飼育歴なし。

現病歴：20XX年9月、咳嗽と鼻汁が出現し、10日ほど持続した。症状は改善したが、次第に左前胸部の腫脹が出現し、左上肢の挙上が困難となった。20XX年12月、左前胸部の腫脹が持続するため他院を受診し、胸部単純X線写真で左上中肺野に腫瘤影を指摘された。精査目的に、当科を紹介初診した。左前胸部は全体的に硬く腫脹し、中心部に径4cmの熱感を伴う発赤を認めた (Fig. 1A)。本人の都合で、1週間後の入院精査加療となった。

入院時現症：身長174.0cm、体重84.0kg、BMI 27.7kg/m²。体温37.2℃、脈拍106/分、血圧131/77mmHg、SpO₂ 99% (room air)。心音・呼吸音は異常なし。左前胸部の発赤範囲は急速に拡大し、径10cmとなった (Fig. 1B)。左胸部全体の緊満した硬結変化のため左上肢は肩より上に挙上不能であった。腋窩・頸部リンパ節腫脹は認めなかった。

入院時血液検査：末梢血液検査ではWBC 14,840/μL、好中球分画82.1%と増加し、Hb 10.8g/dLと貧血を認めた。生化学検査ではAlb 2.8g/dLと低アルブミン血症を認め、CRP 19.27mg/dLと上昇していた。腫瘍マーカーはいずれも陰性であった。また、随時血糖118mg/dL、HbA1c (NGSP) 6.4%と耐糖能異常を認めた。血液培養は陰性、喀痰培養は有意菌を認めなかった。

胸部単純X線写真 (Fig. 2)：左上中肺野に透過性の低下を認めた。

胸部造影CT (Fig. 3A)：左上葉に心膜・胸膜に接する径63mmの辺縁不整な腫瘤影を認めた。腫瘤は左大胸筋へと連続し、胸腔外まで進展していた。心嚢液や両側胸水がわずかに貯留していた。左肺門部・大動脈傍リンパ

連絡先：長井 桂

〒062-8618 北海道札幌市豊平区中の島1条8丁目3-18
独立行政法人地域医療機能推進機構北海道病院呼吸器
センター呼吸器内科

(E-mail: nagai-katsura@hokkaido.jcho.go.jp)

(Received 2 Dec 2022/ Accepted 3 Feb 2023)



Fig. 1 Body surface photographs of the anterior chest showing a stiff, swollen left anterior chest. (A) At the first visit, redness accompanied by a feeling of heat over 4 cm was observed at the center of the swollen skin. (B) At the time of admission 1 week after the first visit, the redness on the left anterior chest had rapidly expanded to a diameter of 10 cm.



Fig. 2 Chest X-ray upon admission showed a decrease in the permeability of the left upper lung.

節が軽度に腫大していた。

入院後経過：経気管支肺生検では可視範囲に異常を認めず、気管支洗浄液の細菌培養、抗酸菌培養は陰性であった。当院皮膚科で左前胸部の発赤腫脹部からの皮膚生検を施行したところ、乳白色の膿汁が大量に排出され、処置直後より左上肢の挙上が可能となった。

臨床診断として丹毒が疑われたため点滴による抗菌薬治療を患者に提案したところ、入院を継続しての治療を希望しなかったため、皮膚生検後より、丹毒に準じてアモキシシリン (amoxicillin: AMPC) 2,000mg/日の内服を開始した。治療開始から1週間後、AMPCの副作用で下痢が出現してきたため、皮膚科で内服薬をスルタミシリン (sultamicillin: SBTPC) 1,125mg/日に変更した。膿汁の細菌培養で *Actinomyces* 属および *Fusobacterium* 属が検出され、*Fusobacterium* 属と共感染した肺放線菌症および胸壁穿破と診断した。両菌ともにペニシリン系、セフェム系抗菌薬に対する感受性は良好であった。*Fusobacterium* 属はクリンダマイシン系抗菌薬の感受性良好、*Actinomyces* 属は中間耐性を示した。皮膚生検では真皮境界部に好中球浸潤の膿瘍と真皮浅層の血管周囲

炎を認めたが、悪性所見や放線菌症に特徴的な菌塊である硫黄顆粒は認めなかった。患者本人に肺病変と皮膚病変は同一の原因であることを説明し、薬剤変更を打診したが、体調はすでに改善傾向のためSBTPCの継続を希望した。加療開始3週間後、胸壁の腫脹や胸部単純X線写真の左肺透過性低下は改善傾向であったが、心嚢液や両側胸水の増加を認めた。再度入院加療を勧めたが希望せず、その後受診が途絶えた。連絡して治療継続の必要性を説明したところ2ヶ月後に当院へ再来院した。その間治療を自己中断したにもかかわらず左前胸部の腫脹はほぼ消失し、心嚢液や両側胸水も改善していた。治療開始から半年以上が経過した現在も、SBTPCの内服を継続しており、再燃なく経過している (Fig. 3B)。血液検査では2ヶ月間の加療中断直後に一時的にCRPの上昇を認めたが、治療再開後からCRPの低下を認め、加療開始4ヶ月後からCRP陰性化を維持している。なお、本患者の治療期間は計12ヶ月間を予定している。

考 察

放線菌症は *Actinomyces* 属の感染により生じる慢性化膿性疾患である。*Actinomyces* 属は口腔内・消化管・女性生殖器に常在する嫌気性グラム陽性桿菌で、特に *A. israelii* が放線菌症の原因菌となる場合が多い¹⁾。放線菌症は顔面頸部型、胸部型、腹部型に分けられるが、そのなかでも胸部型は放線菌症全体の8~20%を占め、肺、気管支、胸膜、縦隔などに病変を形成する¹⁾²⁾。胸部型放線菌症は男女比約3:1で男性に多く、40~50歳代に好発し、齲歯や糖尿病などの基礎疾患が誘因となりやすい²⁾。

一般的に放線菌感染時には、口腔内常在菌や腸内細菌との共感染がしばしばみられる。これらの菌の共感染により、組織内の酸素濃度が低下し嫌気環境がもたらされるほか、食細胞機能の低下が引き起こされ、放線菌が増殖しやすい環境が作り出されると考えられている³⁾。本症

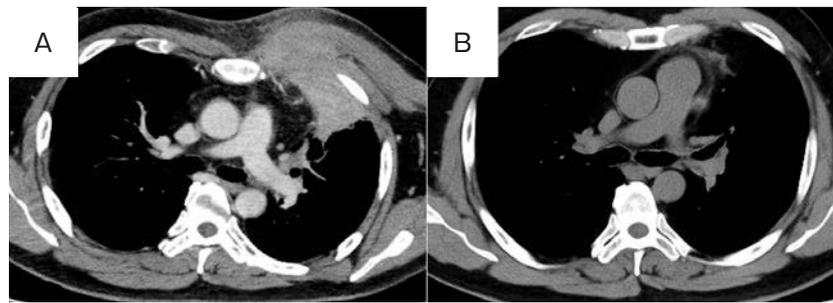


Fig. 3 Contrast-enhanced computed tomography (CT) image of the chest upon admission and unenhanced CT image after treatment. (A) In the left upper lobe, there was a shadow with a heterogeneous contrast effect, which continued to the left pectoralis major muscle and extended to the extrathoracic cavity. There was no destruction of the ribs. The left hilar and para-aortic lymph nodes were mildly enlarged. (B) Six months after starting the medication, the opacities in the left upper lobe and anterior chest wall had disappeared.

例の場合は、口腔内常在菌の *Fusobacterium* 属と共感染をきたしていた。これまでに *Fusobacterium* 属の単独感染による肺膿瘍で胸壁穿破をきたした症例の報告はない。また、胸壁に皮膚放線菌症を形成した症例の報告はある⁴⁾⁵⁾が、皮膚放線菌症の増悪により肺膿瘍を形成した報告はなく、本症例は肺放線菌症の浸潤による胸壁病変と考えられた。

Actinomyces 属による肺病変は、胸壁や縦隔など隣接臓器への浸潤傾向が強いが、本症例のように胸壁穿破や筋肉内膿瘍にまで至る症例は稀である²⁾。Lyzwaらは齧歯菌を有する男性に胸壁穿破を合併した肺放線菌症の1例を報告しており、呼吸困難・胸痛症状の初発から5ヶ月後に胸壁瘻孔を生じている⁶⁾。本症例の肺放線菌症は、歯槽膿漏や耐糖能異常、喫煙による口腔内環境の悪化を背景として発症し、発症から医療機関受診までの3ヶ月間に病変が増大・胸壁浸潤し、筋肉内膿瘍を形成したと考えられた。上肢挙上困難なほどの筋肉の緊満がみられたにもかかわらず疼痛や高熱を認めず、全身状態は良好であったことも受診までの時間がかかった要因と考えられた。発熱や痰がなく、気管支動脈-肺動脈シャントなどの血流を介した肺病変の進展は否定的と考えた。新型コロナウイルス感染症 (coronavirus disease 2019: COVID-19) ではインフルエンザウイルス感染より二次的細菌感染症の致死率が高いという報告があり⁷⁾、感染増悪の原因として先行した感冒症状がCOVID-19であった可能性もある。肺放線菌症はしばしば肺癌の胸壁浸潤との鑑別を要し、肺癌と考えられて切除された術後検体の病理結果により、肺放線菌症の診断に至った例も散見される⁸⁾⁹⁾。しかし本症例の場合は、筋肉内膿瘍として胸壁に進展したため、皮膚生検を施行し、排出膿汁の嫌気培養にて診断確定できた。放線菌は嫌気性のため培養同定が困難で、かつ培養同定に5~7日程度の時間を要することもあ

るため、放線菌症を疑う場合には早期より嫌気培養を積極的に施行すべきと考える。

放線菌症はペニシリン系抗菌薬に対する感受性が良好であるが、治療反応性が緩徐であるため、2~6週の経静脈投与の後、計6~12ヶ月の経口内服が推奨されている³⁾。ペニシリンアレルギーの場合は、クリンダマイシン (clindamycin: CLDM) やドキシサイクリン (doxycycline: DOXY) を用いる。本症例は入院治療を希望しなかったため、治療開始当初からペニシリン系抗菌薬の内服を継続した。治療開始3週間後の時点ですでに肺および胸壁病変の縮小が得られてきており、同病変への治療反応は良好と考えられた。一方、治療開始後から両側胸水や心嚢液が増加し、治療開始3週間後の時点で残存していた。胸膜や心膜に病変が進展し、治療効果の発現が遅れていることが予想されたが、2ヶ月の治療中断後に両側胸水や心嚢液が自然軽快していたことから、慢性炎症由来の低アルブミン血症による胸水および心嚢液の可能性を考慮した。

今回我々は、胸壁穿破および筋肉内膿瘍を形成した肺放線菌症を経験した。発赤・腫脹を伴う胸壁病変を認めただ際には、鑑別疾患の一つとして肺放線菌症を挙げ、検査および治療を進める必要があると考えられる。

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) 吉田耕一郎, 他. 嫌気性菌と放線菌の混合感染による肺化膿症の1例. 日呼吸会誌 2000; 38: 710-3.
- 2) 佐藤哲也, 他. 前縦隔腫瘍との鑑別を要した肺放線菌症の1例—本邦80例の臨床的集計—. 日胸疾患会誌 1997; 35: 888-93.

- 3) Mabeza GF, et al. Pulmonary actinomycosis. *Eur Respir J* 2003; 21: 545-51.
- 4) Mehta V, et al. Primary cutaneous actinomycosis on the chest wall. *Dermatol Online J* 2008; 14: 13.
- 5) Bouaddi M, et al. Unusual actinomycosis of the chest wall. *Pan Afr Med J* 2014; 17: 61.
- 6) Lyżwa E, et al. Pulmonary actinomycosis complicated by fistula of the chest wall. *Adv Respir Med* 2021; 89: 532-7.
- 7) Shafran N, et al. Secondary bacterial infection in COVID-19 patients is a stronger predictor for death compared to influenza patients. *Sci Rep* 2021; 11: 12703.
- 8) Hsieh MJ, et al. Thoracic actinomycosis. *Chest* 1993; 104: 366-70.
- 9) 鶴谷純司, 他. 診断に苦慮した肺放線菌症の1例. *日呼吸会誌* 1999 ; 37 : 934-7.

Abstract

A case of pulmonary actinomycosis with chest wall invasion detected on left precordial enlargement

Akane Mita, Katsura Nagai, Yukiko Maeda, Arei Mizushima,
Natsuko Taniguchi and Toshiyuki Harada
Department of Respiratory Medicine, Center for Respiratory Diseases,
Japan Community Healthcare Organization (JCHO) Hokkaido Hospital

A 48-year-old man was referred to our hospital to investigate shadows in the upper left lung field 3 months after the onset of symptoms. After the cough and runny nose subsided, the patient developed erythema and swelling of the left anterior chest and had difficulty raising his left arm. Chest computed tomography showed a mass shadow in the left upper lobe extending to the left pectoralis major muscle, and pericardial and bilateral pleural effusions were also observed. Cultures of bronchial lavage fluid, sputum, and blood did not reveal any significant bacteria, but a skin biopsy of the left precordial lesion yielded a large amount of milky-white pus, and a bacterial culture of the pus revealed *Actinomyces* and *Fusobacterium* spp. The patient was able to raise his left upper extremity immediately following the purulent drainage. A diagnosis of pulmonary actinomycosis with mixed infection and chest wall invasion was made. The symptoms improved with sultamicillin administration. In this case, mixed infection with *Actinomyces* and *Fusobacterium*, indigenous bacteria in the oral cavity, is thought to have caused infiltration of the chest wall and pericardium. Therefore, pulmonary actinomycosis should be considered as one of the differential diseases when chest wall lesions are observed.