

北海道で寄生、発症した脳肺吸虫症の 1 慢性期例

安村修一、伊藤直樹、田中千春*、平木雅久**
金沢 保***

A Case of Chronic Cerebral Paragonimiasis Infested in Hokkaido

Shuichi YASUMURA, Naoki ITO, Chiharu TANAKA*, Masahisa HIRAKI** and Tamotsu KANAZAWA***

Department of Neurology and *Neurosurgery, Nakamura Memorial Hospital, Sapporo, Japan, **Department of Pediatrics, Takikawa Munisipal Hospital, Takikawa, Japan and ***Department of Parasitology, National Institute of Health, Tokyo, Japan.

Summary : Paragonimiasis is one of the most common parasitic disease in Japan. It has however, never been reported in northern Japan above Aomori prefecture, including Hokkaido. We reported the first case of cerebral paragonimiasis infested in Hokkaido.

An 8-year-old boy has had serial episodes of focal and generalized convulsions since he was 2 years 8 months old. He used to catch crabs (*Eriocheir japonicus*) in Ishikari river and eat them after roasting. He had no previous history of severe headache, vomiting or high fever. On admission, he was alert and orientated. His mentality measured by WISC-R was almost within normal limits. He showed no cranial nerve palsy, motor weakness, sensory impairment, cerebellar signs or other neurological deficits. Hematological data showed no abnormality except for mild eosinophilia. Immunological examinations for the paragonimiasis, such as skin test, complement fixation test, ouchterlony test and antibody titer assaid by ELISA, were all negative. Skull X-ray and CT scan demonstrated prominent characteristic multiple intracerebral calcifications, ranging from 10 to 30 mm in diameter, and each calcification consisted of a clustering of smaller cystic types, which resembled so called "soap bubbles". EEG and cerebral angiography demonstrated no significant abnormalities. His convulsions were well controlled by anticonvulsants.

Although serum immunological tests were negative, cerebral paragonimiasis was strongly suspected on the basis of his history of eating crabs and characteristic radiological findings. In cerebral paragonimiasis, as an ectopic parasitism of the *Paragonimus* species, it is usually difficult to find eggs or adult worms in the feces or sputum, serum immunological tests are also not always positive, especially in the chronic stage.

Analyses of our case indicated that there may be another paragonimus infection in Hokkaido and a survey should be carried out for the detection of the metacercariae of *Paragonimus* in *Eriocheir japonicus* or crayfish.

Key words:

- cerebral paragonimiasis
- intracranial calcification
- soap bubble appearance

はじめに

肺吸虫症は、アジアの温暖地帯に広く分布し⁴⁾、本邦においても西日本を中心に多数の症例が報告さ

れているが、青森県および北海道内での寄生例の報告は見られない。

最近著者らは、幼児期にモクズガニを摂食した経験があり、くり返すてんかん発作を主訴とした1小

児例を経験したが、本症例の頭部単純写およびCTにて、肺吸虫症の異所寄生である脳肺吸虫症に特徴的な所見が見られた。本症例の場合は、生活歴より北海道内で肺吸虫症が成立したものと考えられるため、文献的考察を加え報告する。

症例および結果

患者：8歳、男性。

主訴：てんかん発作。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：母親が3年前に肺結核に罹患。

生活歴：紋別市に生れ、生後4カ月で滝川市に移住したが、北海道外への旅行経験はない。2歳以前より同市内の石狩川でモクズガニを捕えて遊んだり、水槽で飼育をしたり、また数度焼いて食べたことがある。

現病歴：2歳8カ月時、睡眠中に全般強直発作が初めて出現し、以後4歳までに同様の発作が2度見られた。昭和58年8月左顔面より始まり左上肢におよぶ部分発作が出現し、滝川市立病院小児科に入院。頭部単純写およびCTにて頭蓋内異常石灰化像を指摘された。昭和60年2月20日、再び同様の部分発作が出現し、頭部検査のため3月25日、中村記念病院

に入院した。

入院時現症：身長136cm、体重27kg、栄養良好。胸部、腹部に視診および触診上異常所見なく、頭囲拡大なし。神経学的所見では、意識清明、知能は、WISC-RはVerbal I.Q. 96、Performance I.Q. 75、Total I.Q. 84とPerformance I.Q. がやや低いが、明らかな精神発達の遅滞はなく、脳神経系、運動系、小脳系、知覚系、深部腱反射に異常所見は認めなかった。

検査所見：一般血液、尿検査では、末梢血好酸球が8%と軽度の増多を認める以外異常なく、血中カルシウム、燐、パラソルモン、カルシトニンは正常であった。髄液一般検査は異常なく、髄液と胃液の結核菌検査陰性、血清IgE 160IU/ml、便虫卵陰性、血清トキソプラズマ抗体価陰性、血清エキノコックス抗体価陰性、ツベルクリン反応は $9 \times 8 / 24 \times 20$ mmと陽性であった（5歳時に自然陽転）。

覚醒時脳波は、基礎律動は後頭優位の10Hzの α 波で、左右差なく、突発性異常波や著明な徐波の混入は見られなかった。また、睡眠時脳波でも突発性異常波は見られなかった。

胸部単純写では両側肺門部、左下肺野、左腋下部に米粒大から小豆大の不整形の石灰化像が見られ、

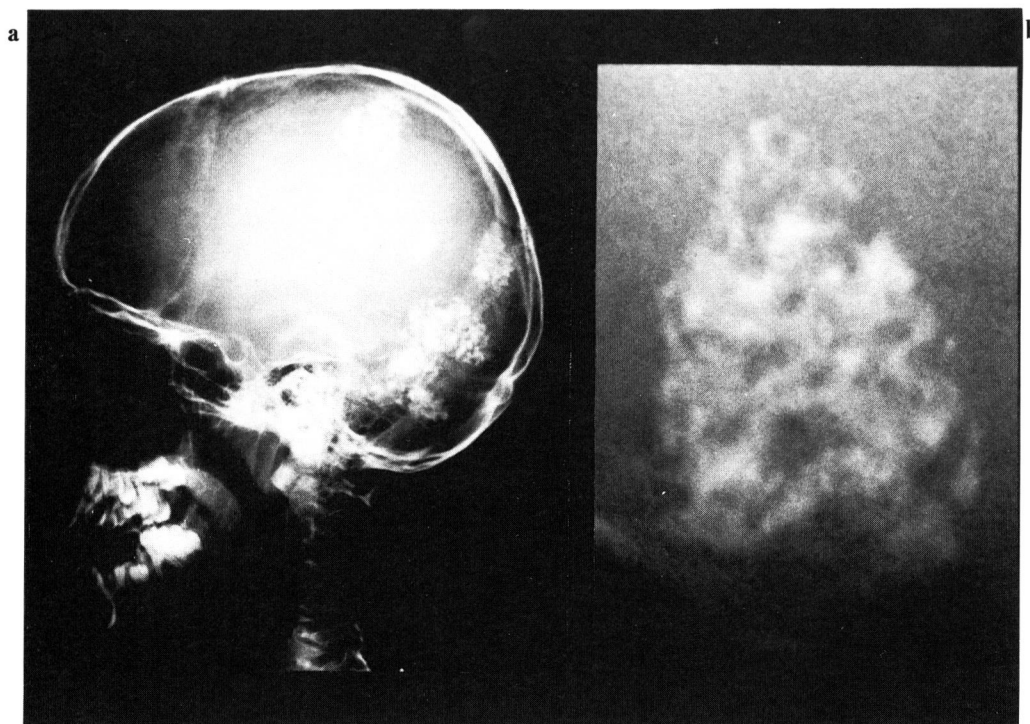


Fig.1 Plain skull films.

Lateral view (a) shows multiple irregular calcification in parieto-occipital areas.

Magnified films (b) shows "soap bubbles like" cluster of small round empty calcification.

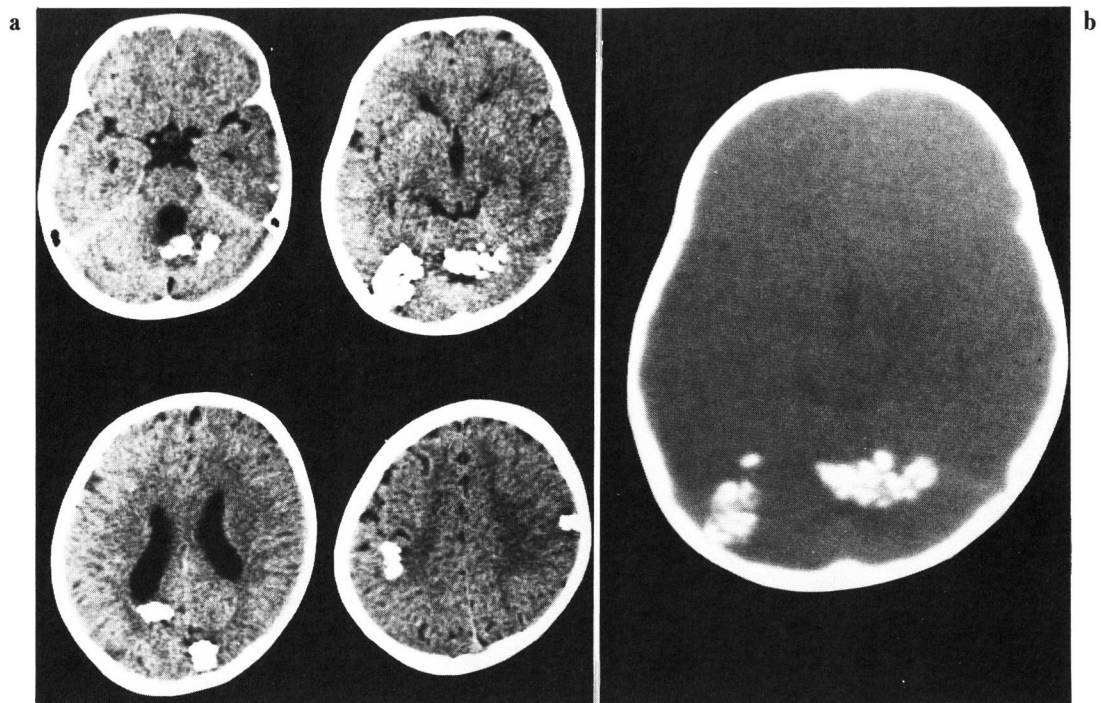


Fig. 2 CT scan.

Plain CT scan(a) shows multiple irregular calcification in the cerebellar hemispheres, near the fourth ventricle, parieto-occipital subcortical areas and near the trigon of the left lateral ventricle.

High window level CT scan(b) shows clusters of small round calcification with central low density areas.

腹部単純写では左腎上方に小石灰化像が見られた。

頭部単純写では、両側の頭頂・後頭部および後頭蓋窩に直径10mmから30mmの不整形の石灰化像が多数見られたが、個々の石灰化像は直径数mmのリング状小石灰化巣の集合からなり、全体として海綿様あるいは石鹼泡様外観を呈した(Fig. 1)。

CTでは、両側の小脳半球、第4脳室近傍、後頭葉・頭頂葉皮質下、側脳室後角近傍に多数の不整形石灰化像が見られ、また脳室系および脳溝の拡大所見も見られた。high window level CTでは石灰化像の形態はさらに明瞭となり、中心部の吸収値が低い小石灰化巣が多数集簇した所見が見られた(Fig. 2)。

脳血管写では、血管偏位や異常血管陰影は見られなかった。

免疫血清学的検査は、ウエステルマン肺吸虫抗原による皮内反応は陰性で、血清補体結合反応、Ouchterlony testも陰性であった。また、enzyme linked immunosorbent assay(ELISA)によるウエステルマン肺吸虫に対する抗体価も陰性であった。

考 察

本症例はモクズガニの摂食経験、胸部・腹部単純写での石灰化像および頭部単純写とCT上のきわめ

て特徴的な石灰化像より脳肺吸虫症と診断した。

肺吸虫症の診断においてまず最も重要なことは、直接の感染源である肺吸虫第2中間宿主の川ガニからの経口感染機会であり、侵淫地域における患者の大部分はこのような機会の多い若年男子である¹⁾⁴⁾⁵⁾。我々の症例も火を通してはいるが摂食の経験があり、不完全調理であったことや調理器具からの感染の可能性がある。

肺吸虫症の臨床症状⁴⁾は血痰、咯血、胸水貯留、気胸などの肺結核様症状が主症状であるが、脳肺吸虫症ではこれら呼吸器症状を伴わないことも多く、急性期では発熱、頭痛、嘔吐、意識障害、運動・知覚麻痺などの脳炎・脳膿瘍様症状が主体である。また、慢性期ではてんかん発作が唯一の症状であることが多いため、臨床診断が困難な場合も少なくない。我々の症例では急性期症状は明らかでなく、慢性期症状のみが見られた。

肺吸虫症の免疫血清学的診断としては、横川らにより考案された皮内反応が、慢性期症例でも陽性率が高いため、スクリーニングテストとしても有用とされているが⁸⁾、皮内反応陰性例で摘出臓器より虫体や虫卵が検出されたとの報告も見られる⁶⁾。また、補体結合反応や凝集反応は治療後すみやかに陰性化

するため、治療効果判定に有用とされている⁸⁾。最近では鋭敏なELISAによる抗体価測定なども診断に応用されているが、とくに慢性期例ではこれらの免疫血清学的検査法によっても診断に限界がある⁶⁾⁸⁾。我々の症例では皮内反応、補体結合反応、ELISAのすべてが陰性であったが、慢性期例であり肺吸虫感染は否定できない。しかし、これら免疫血清学的検査がすべて陰性であったことは、虫体が死滅後すでに数年が経過している可能性が強く、本症例に対して駆虫剤の投与は行なわなかった。

脳肺吸虫症の頭部単純写およびCT所見に関しては諸家の報告があり、診断上きわめて有用とされている。とくに慢性期例では多様な頭蓋内石灰化像を特徴とする³⁾⁵⁾⁷⁾¹⁰⁾、Oh⁵⁾は頭部単純写において、直径7~30mmの多数の円形または卵円形のリング状石灰化像が集めた石鱸泡様石灰化像が、本症の最も特徴的な所見であるとしている。我々の症例の石灰化像はこのような特徴を示す。またCTでは中心部の吸収値が低い多房性のリング様石灰化像が特徴的とされている⁷⁾¹⁰⁾、その他の所見として宇高ら⁷⁾は脳溝・脳室の拡大、および石灰化巣に連続したporencephalic cystをあげている。我々の症例では、とくにhigh window level CTで多房性のリング様石灰化像が明瞭であり、また脳溝・側脳室の拡大も見られる。

北海道における肺吸虫症の実態についてみると、いまだ不明な部分が多く、過去に患者が確認されているが¹⁾、北海道外からの移住者で移住以前に発病しており、北海道内での感染例の報告は見られない。しかし肺吸虫の第1中間宿主のカワナナなどの貝類、および第2中間宿主のモクズガニ、ザリガニは北海道にも分布しており、北海道内においても肺吸虫が棲息する条件はあると考えられる。

1960年横川ら⁹⁾は北海道内の千歳、滝川、網走の3地区にて本症の分布調査を施行したが、対象とした4768名の中学生において本症患者は検出されず、また同地の河川で採集したモクズガニ、ザリガニの体内より肺吸虫のメタセルカリアは証明されなかったと報告している。しかし以後北海道においてこのような組織的な調査の報告はなく、今後再調査の必要があると考えられる。

以上、北海道内にて感染したと考えられる脳肺吸虫症の1症例を報告した。北海道では現在のところ本症寄生の報告がないが、今後北海道においても本症が持続する可能性を否定できない。とくに川ガニの食用には十分な注意が必要と考えられる。また小

児や若年者で、てんかん発作や頭蓋内圧亢進症状を呈する症例の鑑別診断として、本症も考慮する必要があると考えられる。

まとめ

肺吸虫症は本邦で最も多く見られる寄生虫疾患のひとつであるが、従来青森県および北海道での発症の報告はない。我々は北海道で発症したと考えられる本症の1例を報告した。

症例は8歳の男子で、2歳8カ月時よりくりかえす部分および全身発作を主訴として来院した。患者はしばしば石狩川でカニ(モクズガニ)を捕まえたり、焼いて食べた経験がある。既往歴に強度の頭痛、嘔吐、高熱はみられていない。入院時の意識は清明で、見当識は良好であった。WISC-Rでは明らかな精神発達の遅滞は見られず、脳神経麻痺、運動麻痺、知覚麻痺、小脳症状その他の神経症状は認めなかった。血液所見では、軽度の好酸球増多を認める以外異常なく、肺吸虫に対する皮内反応、補体結合反応、Ouchterlony test、ELISAなどの免疫学的検査はすべて陰性であった。頭部単純写とCT scanでは直径10から30mmのきわめて特徴的な頭蓋内石灰化が見られ、個々の石灰化は小さな嚢胞状の石灰化の集簇からなる“石鱸泡様”所見を示した。脳波および脳血管写では、特記すべき異常所見を認めなかった。痙攣発作は抗痙攣剤の服用により経過良好であった。

血清免疫学的検査は陰性であったが、濃厚なモクズガニとの接触経験およびきわめて特徴的な放射線学的所見より、脳肺吸虫症が強く疑われた。肺吸虫の異所寄生である脳肺吸虫症では、しばしば糞便や喀痰中より肺吸虫の虫卵や成虫を検出することが困難であり、とりわけ慢性期例では血清免疫学的検査で必ずしも陽性とならぬ場合がある。

本症例の検討より、今後北海道においても本症が持続する可能性があり、北海道の河川に棲息するモクズガニ、ザリガニより肺吸虫のメタセルカリアを検出する必要があると考えられる。

文 献

- 1) 東 健一郎：脳肺吸虫症の外科的治療. 臨床外科 27 : 983-990, 1972
- 2) 稗田一俊：北海道の淡水魚. 北海道新聞社, 札幌, 1984, p196, p200, p213
- 3) Kim, E.H. & Bahk, Y.W. : Intracranial calcification in cerebral paragonimiasis. Br J Radiol 37 : 670-673, 1964
- 4) Oh SJ : Paragonimiasis in the central nervous system, in Handbook of clinical neurology, ed. by Vinken, P. J. and Bruyn, G. W., vol.35, infection of the nervous sys-

- tem part III, North-Holl and Pub. Co., Amsterdam, 1978, p.243-266
- 5) Oh SJ : Roentgen findings in cerebral paragonimiasis. Radiology 90 : 292-299, 1968
 - 6) 鈴木了司, 吾妻 健, 吉田泰夫, 山根敏子, 原 弘, 田島幸一, 久下 裕, 高橋聖之, 大拙祐治, 赤木忠厚, 荒木国興 : 腹部肺吸虫症の2例. 日本熱帯医学会雑誌 13 : 251-258, 1985
 - 7) 宇高不可思, 奥田文悟, 岡田方子, 岡江俊二, 亀山正邦 : 脳肺吸虫症のCT所見. CT研究4 : 687-693, 1982
 - 8) 横川宗雄 : V肺吸虫症の診断と治療. 医学の動向 23 : 102-127, 1959
 - 9) 横川宗雄, 辻 守康, 大倉俊彦, 吉村裕之, 市川公穂 : 北海道における肺吸虫症の分布調査について. 寄生虫学会雑誌 10 : 578-581, 1961
 - 10) Yoshida, M., Moritaka, K., Kuga, S., Anegawa, S., : CT findings of cerebral paragonimiasis in the chronic state. J Comput Assist Tomogr 6 : 195-196, 1982