

症例報告

生きた *Spirometra erinaceieuropaei* を開頭摘出した一例

榎谷 将偉¹⁾ 相澤 希¹⁾ 白井和歌子¹⁾ 徳光 直樹¹⁾

佐古 和廣¹⁾ 菅野 進一²⁾

Key Words: マンソン孤虫症, 開頭術, 痙攣発作, 抗痙攣剤

はじめに

マンソン孤虫症は、一般的にマンソン裂頭条虫の幼虫である plerocercoid (擬充尾虫) が皮下・筋肉へ寄生し、遊走性限局性皮膚腫脹ないし腫瘤を形成する疾患である。しかしながら、稀に脳内寄生する例が存在する。今回我々は、脳内寄生したマンソン孤虫を開頭下に摘出した症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 58歳, 男性

主訴: 構語障害, 痙攣発作

既往歴: 特記すべきことなし

嗜好歴: 特記すべきことなし

現病歴: 平成18年10月中旬より構語障害が出現し、同年10月25日当科初診。頭部CT・MRI (造影) で脳腫瘍が疑われた。病変が多発性であり、転移性脳腫瘍も念頭に入れ、全身検索も行ったが明らかな原発巣が確定できず、外来にて追跡していた。しかし、平成19年7月29日工作中に突然全身強直間代性痙攣が出現。バルプロ酸内服を開始したが、その後も痙攣発作を繰り返すため、上記病変の精査加療目的に平成19年10月20日入院となった。

神経学的所見: 構語障害を認めるが、他の局所神経症状なし

検査所見: (表1) 参照

入院時画像所見: 頭部CTでは左前頭葉に小点状石灰化と周囲の浮腫性変化を認めた (図1)。同部位MRIにおいてT1強調像で低信号域・T2強調像で高

信号域・FLAIRで高信号域であり脳白質の浮腫性変化を認めるのみであった。Gd-DTPAによる造影MRIでは、ring状の造影効果をもつ小結節部位と近傍側脳室の軽度拡大を認めた (図2)。

脳血管造影検査では明らかな異常所見は認めなかった。

入院後経過: バルプロ酸内服に加え、ガバペンチンを併用開始したが、入院後も痙攣が頻発したため、病理組織診断と焦点切除の目的で、平成19年10月31日開頭下生検施行した。左頭頂開頭にてアプローチし、硬膜を切開したところ、脳表に蠕動運動を認める白い線状の虫体が存在していた (図3)。虫体は脳内に連続していたため損傷しないように虫体と周囲脳実質を摘出した。摘出した虫は約12cmあり、微温生理食塩水中にて緩慢に蠕動運動していた (図4)。虫体の遺伝子検索の結果は、マンソン孤虫 (*Spirometra erinaceieuropaei*) であった。同時に検査したマンソン孤虫 plerocercoid 抗原に対する血清抗体も陽性であった。術後は痙攣発作を認めず、経過良好で平成19年11月9日退院した。

考 察

マンソン孤虫症は、マンソン裂頭条虫の幼虫である proceroid (前擬充尾虫)、あるいは plerocercoid (擬充尾虫) を摂取することにより発症する。proceroidが寄生した第一中間宿主であるケンミジンコが存在する水の摂取、もしくは plerocercoidが寄生する第二中間宿主であるヘビ・トリ・カエルなどの肉の刺身を人間が摂取することにより感染する (人間の体内では5~20年生存すると言われている)。人の体内では成虫にならず plerocercoidのまま体内を移動し、その寄生部位としては皮下組織が一般的であるが、脳内寄生例も

¹⁾ 名寄市立総合病院 脳神経外科

²⁾ 名寄市立総合病院 検査科

存在する¹²⁾。1918年にTakeuchiらが脳内寄生例を最初に報告して³⁾以来、同疾患に関して中国・韓国・日本などのアジア地方で多く報告されている。そのなかで、現在までに“生きたplerocercoid”を摘出した症例は、渉猟しえた範囲では本症例を含め11例存在する⁴⁾¹¹⁾ (表2)。脳内への感染経路は未だ不明であるが、頭蓋底、及び、脊柱に存在する粗性結合組織からなる各種解剖学的裂孔を経て寄生する可能性が指摘されている。

症状としては一般に急性期症状と慢性期症状に分けられる。急性期症状としては髄膜炎症状を、慢性期症状としては嚢腫・腫瘍・肉芽腫形成により運動麻痺・知覚麻痺・視野欠損・痙攣などの脳腫瘍症状を呈する。

Moon WKら¹²⁾の報告によれば頭部CT所見としては、

①隣接する脳室の拡大を伴う脳白質の萎縮

②不規則な、もしくは結節状の造影効果を持つ

③小点状石灰化を示すなどがあげられ、それらは病理組織学的に虫体周囲の白質変性が進んでいる状態、肉芽腫形成、球状石灰小体などを反映しているとしている。MRIは頭部CTよりも脳白質病変を鋭敏に描写することができる。しかし、逆にCTにおけるマンソン孤虫症の重要な所見である小点状石灰化はMRIではむしろ描出が困難である。T2WIでは浮腫性変化を示すhigh signal intensityを広範に認めるが、しばしばarea内の皮質下に沿ってlow signalを認めることがある。これはマンソン孤虫が移動する過程において毛細血管や静脈を障害するため起こる点状出血を表しているのであろうと考えられている¹²⁾。造影MRIでは周囲に浮腫性変化を伴う集塊したリング状、もしくは数

珠つなぎの造影パターンをしばしば呈するが、それはマンソン孤虫そのものの形に類似しており、それ自身を反映している可能性が高い¹³⁾。

鑑別診断としては、感染性肉芽腫、原発性・転移性悪性新生物、陳旧性脳梗塞、変性疾患などがあげられる。特に転移性脳腫瘍との鑑別が困難である場合が多い。しかしながら本疾患では“近傍側脳室の拡大”を伴う脳白質変性が存在し、造影される部位が不整な集塊状結節を示すのに対し、他の肉芽腫性病変や転移性脳腫瘍の場合は、よく造影される円形の結節であり近傍側脳室の拡大をきたすことはない。同側脳室拡大が存在する脳白質損傷が造影効果をもたない場合、陳旧性脳梗塞や脳軟化症などと鑑別することは難しい。このような場合も含めまとめると、上記画像所見が得られ、体内に他に腫瘍性病変が存在せずといった症例に遭遇した場合、本疾患を念頭におきヘビ・カエル・生の鶏肉摂取などの生活歴がないかどうかを聴取すべきである。そのうえでもしも本疾患が疑われる場合は、鑑別に有用であるとされている血清や髄液中のマンソン裂頭条虫抗体価を調べるべきである。

治療としては、駆虫剤（プラジカンテル）内服による治療も行われることがあるが確実性がなく、本症例のように虫体・周囲肉芽組織を外科的に取り除くのが確実であると言われている。しかしながら、本当に外科的治療が必要な症例は現在虫体が生存している場合である。そこで、脳内に寄生しているマンソン孤虫の生死が問われるのだが、現在それを判定する方法はなく、今後さらなる研究が必要であると思われた。

表1 入院時検査所見

血算		生化	
WBC	5400/μl	GOT	105IU/l ↑
(Eos)	0%	GPT	206IU/l ↑
RBC	473 万/μl	LDH	228IU/l ↑
Ht	42.70%	γ-GTP	118IU/l ↑
Plt	13.2 万/μl	ALP	265IU/l
		T-Bil	0.7mg/dl
		BUN	9.2mg/dl
		Cre	0.73mg/dl
		TP	6.6g/dl
		CK	53 IU/l
		Na	142mEq/l
		K	4.0mEq/l
		Cl	100mEq/l

※軽度肝機能障害を認めるが、要因となる生活歴なく腹部CT 上も異常所見認めず。
入院中に自然緩解した（バルプロ酸投与による副作用と思われる）。

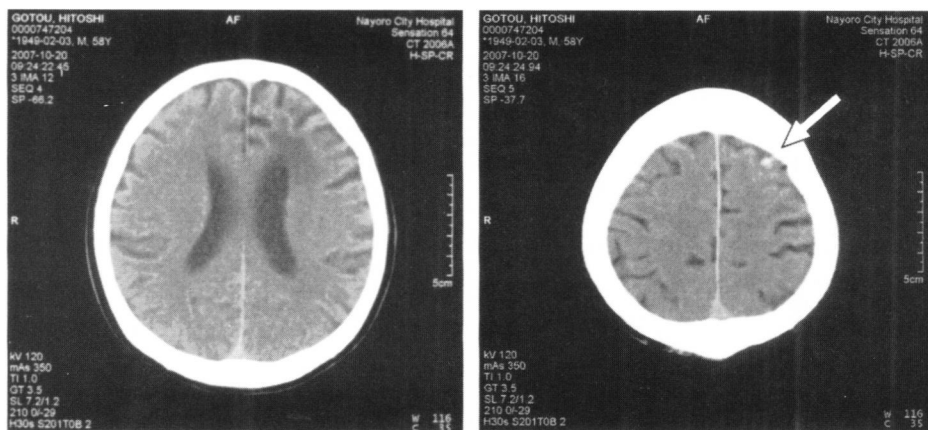


図1 頭部単純CT

左前頭葉に小点状石灰化(矢印)を認め、周囲脳白質浮腫性変化を認める。

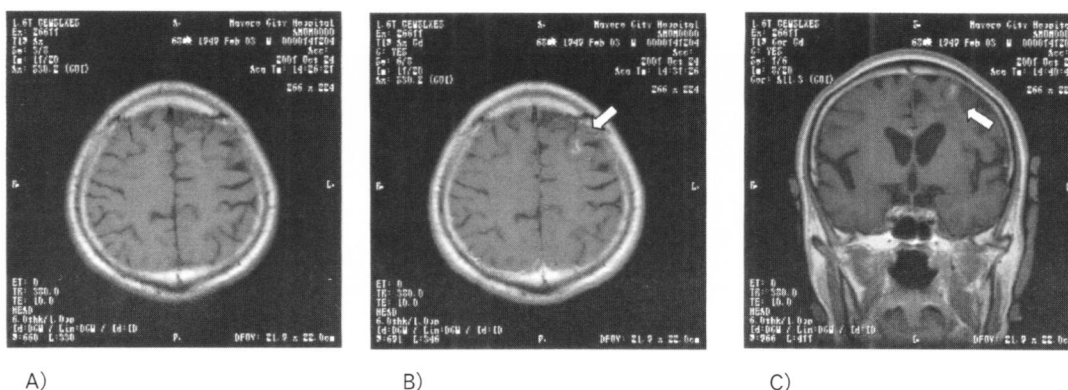


図2 MRI (T1強調画像、Gd-DTPA造影)

A)T1強調画像：左前頭葉皮質にCT上みられた小石灰化病変など明らかなmass認めず、脳白質の浮腫性変化を認める。B)Gd-DTPA造影<水平断>, C)Gd-DTPA造影<冠状断>：左前頭葉皮質に造影効果を伴う小結節病変(矢印)と、周囲の浮腫性変化を認める。同病変によるmass effectを認めず、むしろ近傍側脳室の軽度拡大を認める。

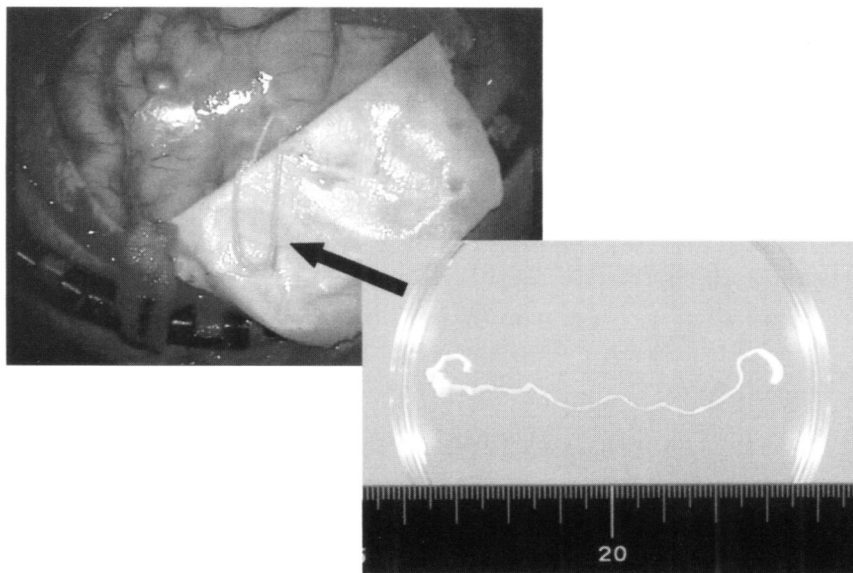


図3 長さ約12cmの白い線状の虫体を摘出した。虫体は微温生理食塩水内で緩慢に蠕動運動を繰り返していた

表2 生きたマンソン孤虫を摘出した11症例

Case No.	年齢 (年) 、性別	症状	寄生部位	抗体価		感染経路	発症までの期間
				血清	髄液		
Nakajima et al: 1984 ⁴	40、男	痙攣、左半身感覚鈍麻	右側頭葉	施行せず	施行せず	淡水魚(コイ)の生食	3年
Anegawa et al: 1989 ⁵	7、男	左半身麻痺	右視床	+	施行せず	詳細不明	3ヶ月
Yamashita et al: 1990 ⁶	60、男	左顔面感覚鈍麻	左側頭葉	施行せず	施行せず	詳細不明	4ヶ月
Tsai et al: 1993 ⁷	49、女	右半身麻痺	左頭頂葉	施行せず	施行せず	未洗浄水飲水	3ヶ月
Okamura et al: 1995 ⁸	80、男	右半身麻痺	左頭頂葉	施行せず	施行せず	未洗浄水飲水、野草摂取	14日
Dong Gyu et al: 1996 ⁹	19、男	頭痛	-	+	+	未洗浄水飲水	8ヶ月
	29、男	痙攣	-	+	+	ヘビ肉摂取	3年 5ヶ月
	6、女	痙攣	-	+	施行せず	未洗浄水飲水	4ヶ月
Jeong et al: 1998 ¹⁰	61、女	左半身麻痺	右前頭頂葉	+	+	カエル肉摂取、池の水飲水	6ヶ月
Nobayashi et al: 2006 ¹¹	64、男	痙攣	右後頭葉	+	+	生鶏肉摂取	1ヵ月
我々が経験した症例	58、男	痙攣	左前頭葉	+	施行せず	不明	不明

おわりに

脳内寄生したマンソン孤虫を外科的に摘出した一症例を経験した。今後同様な症例に遭遇した場合、本疾患を念頭におき、患者の念入りな生活歴聴取をし、本疾患が疑われる場合は鑑別に有用であるとされている血清・髄液中抗体価を調べる必要があると思われた。

文 献

- 1) 吉田幸雄: 図説人体寄生虫学, 第5版. 南山堂. 1996. p182~185
- 2) 山田壮亮, 谷本昭英, 松木康真, 笹栗靖之: 診断病理, 2006.23.p296~298
- 3) Takeuchi K: Nippon Byori Kaishi 7. 611-620,1918
- 4) Nakajima H, Mitsui T, Suzuki M, Takei K, Ishida Y, Kamo H [cerebral sparganosis. Case report]. Neurol Med Chir 24: 427-432,1984
- 5) Anegawa S, Hayashi T, Ozuru K, Kuramoto S, Nishimura K, Shimizu T, Hirata M [Sparganosis of the brain]. J Neurosurg 71: 287-289,1989

- 6) Yamashita K, Akimura T, Kawano K, Wakuta Y, Aoki H, Gondou T [cerebral sparganosis mansoni. Report of two cases]. Surg Neurol 33: 28-34,1990
- 7) Tsai MD, Chang CN, Ho YS, Wang ADJ [Cerebral sparganosis diagnosed and treated with stereotactic techniques]. J Neurosurg 78: 129-132,1993
- 8) Okamura T, Yamamoto M, Ohta K, Matuoka T, Uozumi T [Cerebral sparganosis mansoni. Case report]. Neurol Med Chir 35: 909-913,1995
- 9) Dong Gyu Kim MD, Sun Ha Paek MD, etc [Cerebral sparganosis: clinical manifestations, treatment, and outcome]. J Neurosurg 85:1066-1071,1996
- 10) Jeong SC, Bae JC, Hwang SH, Kim HC, Lee BC [Cerebral sparganosis with intracerebral hemorrhage: a case report]. Neurology 50: 503-506,1998
- 11) Nobayashi M, Hirabayashi H, Sakai T, Nishimura F, Fukui H, Ishikawa S, Yoshikawa M [Surgical Removal of a Live Worm by Stereotactic Targeting in Cerebral Sparganosis]. Neurol Med Chir 46,164-167,2006
- 12) Chang KH, Chi JG, Cho SY, Han MH, Han DH, Han MC [Cerebral sparganosis: analysis of 34 cases with emphasis on CT features]. Neuroradiology 34:1-8,1992
- 13) Moon WK, Chang KH, Cho SY, et al [Cerebral sparganosis: MR Imaging versus CT Features]. Radiology 188: 751-757,199