

短 報

青森県で原発した多包虫症の1例

高橋 昭 博 山口 富 雄  
稲 葉 孝 志 林 博 昭

(昭和60年5月28日 受領)

**Key words:** multilocular echinococcosis, case report

わが国における多包虫症は、桂島(1926)の報告にはじまり、1984年末までに約290症例が記録されているが、そのうち、北海道からの報告が約230例と大多数を占める。また、本州からの症例の多くも、北海道、千島、シベリアなど本症の既知流行地との関連が認められているが、症例の一部にはいわゆる「原発例」が存在することも事実である。

われわれは、最近、青森県下において、原発と考えられる肝多包虫症の1例を経験したので、その概要を報告する。なお、1926年~1984年の間に北海道以外の地方から報告されている本症は60例に達するが、その詳細については、別途、本誌に掲載予定である。

症 例

患者：52歳，男性，農業。

主訴：右季肋部痛。

既往歴：31歳時肺炎，51歳時右側腹部打撲のほか特記事項はない。

生活歴：静岡県三島市生。8歳まで東京都，9歳まで函館市，17歳まで秋田県男鹿市，25歳まで青森県六ヶ所村，以後同県東北町に27年間在住し，海外渡航歴はない。六ヶ所村在住時に，イヌを3頭食べたことがあり，26歳以降にイヌを計6頭飼育しているが，その出所は不明である。

現病歴：1983年5月初旬から右季肋部痛が出現し公立野辺地病院を受診。腹部腫瘤が触知され，超音波検査で巨大肝嚢胞が証明されて入院。腹部CT scan，腹部動脈撮影などにより，cystadenocarcinomaを疑われ，同年11月7日，弘前大学第1内科に転院した。野辺地病院入院中，3回にわたり嚢腫の穿刺，drainageにより内容液

を約380ml 排除している。

入院時現症：身長167cm，体重55kg，栄養良。体温36.7°C，脈拍84/分正。血圧118~60mmHg。眼結膜に黄疸，貧血なく，肺野清明，心音正常。右乳線上肋骨弓下に肝を4横指触知するが，脾は触知しない。表在リンパ節の腫張はなく，浮腫もみられない。

検査所見：入院時検査所見の概要は，血液学的検査では，血沈の著明な亢進，軽度の正赤血球貧血，白血球の増加を認めるが，好酸球数は正常範囲内である。生化学的検査では，総蛋白の増加，アルブミンの減少， $\gamma$ -グロブリンの著増，アルカリホスファターゼとLDHの軽度上昇があり，血清鉄，TIBCの減少と血清銅の増加も認められるが，CEA， $\alpha$ FPは正常である。免疫グロブリンはすべて増加傾向にあるが，IgEとIgGの増加が目立つ。血清学的検査では，CRP陽性。尿沈査では赤血球の出現がみられるが，糞便検査では，潜血，虫卵ともに陰性である（Table 1）。

胸部単純写真では右横隔膜の挙上，腹部単純写真では右上腹部に不正な石灰化像が認められた。

腹部超音波検査では，肝腫大と右葉のほぼ全域を占める巨大な嚢腫性病変が認められ，嚢腫壁の全周性肥厚と一部石灰化像，壁より内腔に突出する結節状の実質像も認められた。

腹部CT scanでは，肝右葉に径17cm大の巨大な低吸収域が存在し，後方よりこの低吸収域内に突出する不正形の構造と石灰化像を認め，左腎内にも低吸収域の存在を認めた。

腹部血管造影では，右肝動脈は大きく弧状に圧排伸展され，病変部はavascularで，静脈相においてもtumor stainは認められない。

カウンター免疫電気泳動では，多包虫(Em)，有鉤囊虫(Cc)，肝蛭(Fh)，日本住血吸虫(Sj)，肝吸虫(Cs)，

Table 1 Laboratory findings

ESR 133 (1 hr)	$\alpha$ FP 1.0 ng/ml
CRP (+)	TB 0.6 mg/dl
RBC 375 $\times$ 10 <sup>4</sup>	DB 0.2 mg/dl
Hb 10.1 g/dl	GOT 20 U/l
Ht 32.5%	GPT 14 U/l
WBC 9,700 (Eo: 1%)	LDH 287 U/l
TP 9.2 g/dl	ALP 145 U/l
Alb 2.6 g/dl	$\gamma$ -GTP 58 U/l
A/G 0.4( $\gamma$ -G1: 53.3%)	IgG 4,380 mg/dl
Fe 22 $\mu$ g/dl	IgA 421 mg/dl
Cu 180 $\mu$ g/dl	IgM 286 mg/dl
CEA 1.7 ng/ml	IgE 5,100 IU/ml

旋毛虫 (Ts), 犬蛔虫 (Tc) および赤痢アメーバ (Eh) の8種抗原を用いて反応を行った結果, 多包虫抗原に最も強い沈降線の出現を認め, 肝蛭, 有鉤囊虫抗原などでも類属反応と考えられる弱陽性反応を示した。

IgE RAST 法による包虫症の検査でも, 3 RAST score (3.7 PRU/ml) と強陽性を示し, 赤痢アメーバ CFT は8倍以下と陰性であった。

入院後経過: 以上の臨床所見, 検査所見, とくに肝右葉に孤立性の巨大な囊腫性病変を形成し, 内腔に多量の液を含むことなどから, 本症例は臨床的に肝単包虫症と診断された。経過中, 出血傾向の出現を認め, mixing test の結果, 循環抗凝固物質によるものと推定されたため, 2回にわたり血漿交換を施行した後, 1984年1月26日, 肝右葉切除により囊腫を摘出した。

手術所見: 囊腫は肝右葉のほぼ全域を占め, 表面は黄白色で, 腹膜, 横隔膜との癒着が著明であったが, 肝右葉とともに囊腫を切除した。

病理学的所見: 切除された囊腫は20 $\times$ 17 $\times$ 11cm 大, 重量2,580g で, 内容液を約800ml 吸引排除後割を入れたところ, 囊腫内には単包虫にみられるような daughter cyst の形成はなく, また, 内容液中に包虫砂は認められなかった。囊腫内面は壊死状で, 囊腫壁の厚さは5-33 mm であった。囊腫壁の組織学的所見は, PAS に濃染する大小多数の cuticle の存在が認められ, 多包虫に特有の構造を示したが, 原頭節は認められなかった。この結果から, 本症例は術前に考えられた単包虫症ではなく, 多包虫症であることが明らかとなった。

術後経過: 術後経過は順調で, 患者は現在外来通院中である。カウンター免疫電気泳動も経時的に follow up しているが, 術後323日後の血清では, 多包虫抗原に対する反応もきわめて微弱なものとなり, 左腎内の囊腫性

病変が多包虫によるものとは考え難い。また, 術後入手した単包虫抗原を用いて, 術前血清と反応を試みたところ, 反応は微弱であって, 術前に本抗原も用いておれば, 臨床診断を誤ることはなかったものと考えられる。

### ま と め

多包虫の肝内における発育は, 外生出芽によって周囲に浸潤する傾向が強く, 今回症例のように巨大囊腫の像を呈することは稀と考えられ, Hanstein (1957) は, 本症が巨大囊腫を形成することはないと述べているが, 本州例の60例中8例 (13.3%) に巨大囊腫の形成が認められている。これらのうち, 赤井ら (1984) の例は, 囊腫内部に胆道瘻を形成したものである。今回の症例にきわめて近似した臨床像を示した例として, 石井ら (1961) の報告があり, 肝左葉のほぼ全域を占める単一な巨大囊腫を形成していたが, 組織学的には多包虫の構造を示していた。また, 鈴木 (1970) は, 肝右葉の巨大単一囊腫例を報告し, 単包虫症と考えられると述べているが, 組織学的には明らかに多包虫の構造である。

多包虫が巨大囊腫を形成する機序としては, 長年月にわたる緩慢な経過の後, 中心部の壊死, 融解, 空洞化とそれに続く液成分の貯留が考えられるが, 液貯留の機序の詳細は不明である。なお, 今回の症例の貯留液について検査した結果, 蛋白量は6.3g/dl と血清中のそれに近く, 免疫学的には抗原物質は全く含まれず, 多包虫抗原に強い反応を示して抗体の存在が確認された。

貴重な症例をご提示いただいた公立野辺地病院内科, 弘前大学第1内科および同第2外科各位, 包虫抗原を供与いただいた北海道大学 大林正士教授に深甚の謝意を表す。

なお, 本論文の要旨は, 1984年および1985年, 第31回日本寄生虫学会北日本支部大会および第54回日本寄生虫学会大会においてそれぞれ発表した。

### 文 献

- 1) 赤井裕輝・小林和人・大槻昌夫・鈴木勃志, 成井 貫, 菅原 啓, 太田 恵, 平田 徹, 小野寺博義, 及川正道, 後藤由夫, 鮎川普次郎 (1984): 千島にて感染したと考えられる肝エヒノコックス症の1例. 日消会誌, 81, 143.
- 2) Hanstein, H. (1957): Medikamentöse Behandlung des *Echinococcus multilocularis*. Dtsch. med. Wschr., 82, 316-317.
- 3) 石井克太郎, 田島幸雄, 宮川弘彬 (1961): 肝包虫による巨大肝臓囊腫例. 臨消, 9, 279-281.
- 4) 鈴木正司 (1970): 肝包虫症の1例. 中通病院医報, 11, 440-451.

[Jpn. J. Parasitol., Vol. 34, No. 6, 509-512, December, 1985]

**Abstract**

A CASE REPORT OF AUTOCHTHONOUS MULTILOCLAR  
ECHINOCOCCOSIS IN AOMORI PREFECTURE

AKIHIRO TAKAHASHI, TOMIO YAMAGUCHI,  
TAKASHI INABA AND HIROAKI HAYASHI

(*Department of Parasitology, Hirosaki University School  
of Medicine, Hirosaki 036, Japan*)

The patient, a farmer of 52-year-old man, living in Tohoku-machi, Aomori Prefecture, from 25 years of age. He was admitted to the Hirosaki University Hospital on November 7, 1983, because of right hypochondriac pain and noted a huge mass from epigastric to right lower quadrant regions. The clinical diagnosis was suspected as cystadenocarcinoma by abdominal ultrasonography, CT scan and arteriography.

After admission, the countercurrent immunoelectrophoresis was performed in our laboratory and gave a strongly positive reaction for *Echinococcus multilocularis* antigen. However, it was thought to be an unilocular echinococcosis because of an abundant amount of fluid in the cyst.

On January 26, 1984, he had hepatectomy of right lobe. The removed tumor was 20×17×11 cm in size and weighed 2,580 g. After suction of about 800 ml cyst fluid, the incision was made on the tumor. There were no daughter cysts and hydatid sands, and the inside of the cyst wall varied in thickness from 5 to 33 mm.

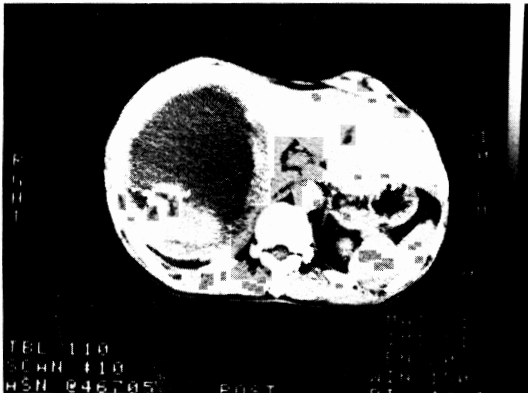


Fig. 1 CT scan of the abdomen shows a huge mass in the right lobe of the liver with calcification.



Fig. 2 The plain x-ray film of the abdomen shows calcified shadow in the right lobe of the liver.

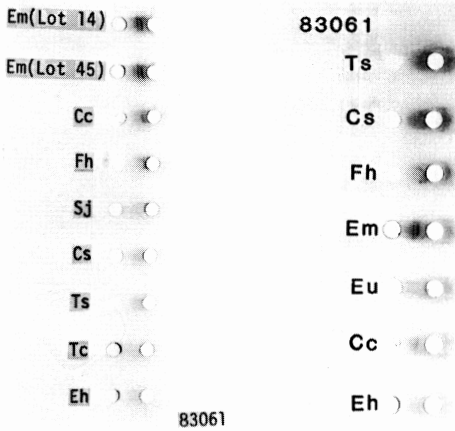


Fig. 3 Countercurrent immunoelectrophoresis. Em: *E. multilocularis* antigen.



Fig. 4 Removed cystic tumor: 20×17×11 cm in size; 2,580 g in weight.



Fig. 5 The cutting finding of the tumor. Inside of the cyst wall was replaced with necrotic substances.

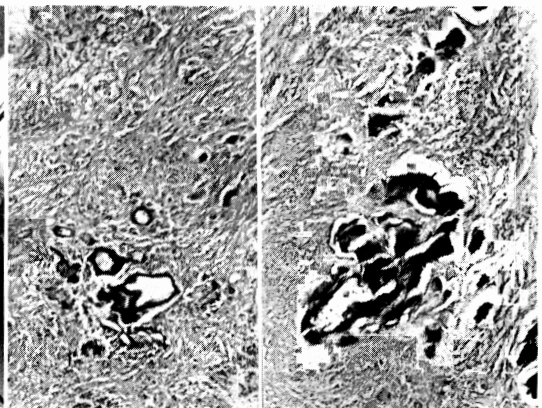


Fig. 6 Characterized alveolar cysts are seen, stained by PAS.