

## 症例報告

## 肺性肥大性骨関節症を伴い、特異な経過をとつた肺結核症の1例

宮里逸郎・谷合 哲・千田 守  
嶋瀬順二・今川 珍彦・武内 重五郎

東京医科歯科大学第2内科

受付 昭和52年4月23日

A CASE OF "LOWER LUNG FIELD TUBERCULOSIS" ASSOCIATED WITH  
HYPERTROPHIC OSTEOARTHROPATHY AND MULTIPLE CAVITARY LESIONS

Itsuro MIYAZATO\*, Satoshi TANIAI, Mamoru CHIDA,  
Junji SHIMASE, Uzuhiko IMAGAWA and Jugoro TAKEUCHI

(Received for publication April 23, 1977)

A 19 years old male, student, whose symptoms occurred acutely with high fever and nonproductive cough.

Chest roentgenogram revealed extensive diffuse infiltration in the whole field of right lung. Pneumonia was suspected and treatment with antibiotics was started. No sign of improvement was observed. Night sweating, emaciation and hypertrophic osteoarthropathy appeared after one and a half month from the onset. Sputa culture was negative. Various antibiotics were administered, but no effect was observed, and high fever continued.

Three months later, multiple cavities appeared in the infiltrated lesion. Staphylococcal pneumonia was suspected, and KM and Staphicillin were administered. Six months later, gastric juice culture revealed 1~2 colonies of acid-fast bacilli. Drugs were changed to KM·INH·EB. Chest roentgenogram revealed increased cavitary lesions and cystic or bullous lesions. Eight months later, the patient was operated due to pneumothorax in the right side. With the findings at operation all of the signs described above were regarded to be attributable to tuberculosis macroscopically and microscopically. In conclusion, the case is so called "lower lung field tuberculosis".

## はじめに

肺結核症は日常よくみられる呼吸器疾患であるが、その診断は結核菌を証明しえない場合、症状とX線写真に頼らざるをえず、他の炎症性肺疾患や腫瘍などの鑑別が困難なことも少なくない。われわれは発症が急激で、肺性肥大性骨関節症を合併し、X線像ははじめ広範な浸潤性陰影で、後に多発性嚢胞性陰影となり、気胸を発症

し、手術により肺結核症と診断しえた症例を経験したので報告する。

症例：■■■■，19歳 男，学生

主訴：発熱，咳，四肢の運動制限

家族歴：特記すべきものはない

既往歴：12歳虫垂切除

現病歴：生来きわめて健康であつたが、昭和48年12月6日、突然発熱，咳などの症状が出現して近医を受診し、

\* From the 2nd Department of Internal Medicine, Tokyo Medical and Dental University, 5-45, 1-chome, Yushima, Bunkyo-ku, Tokyo 113 Japan.

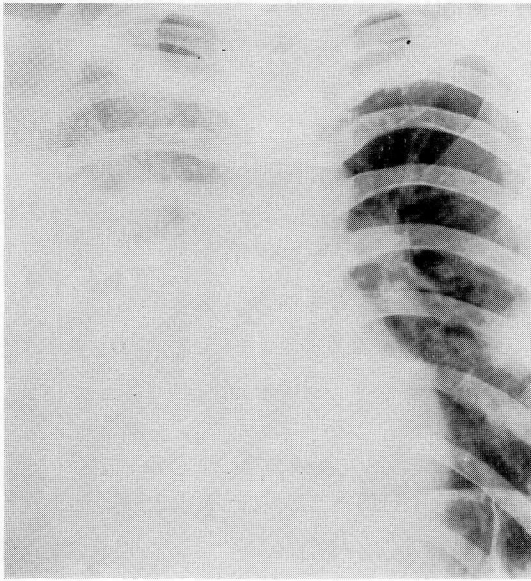


Fig. 1. 49年1月胸部正面

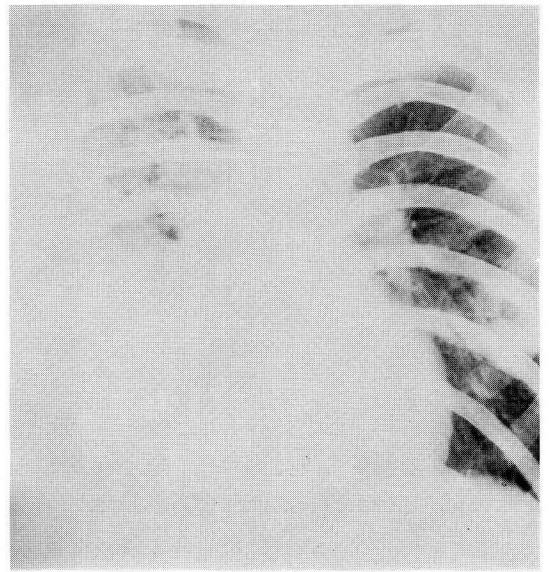


Fig. 5. 入院時胸部正面

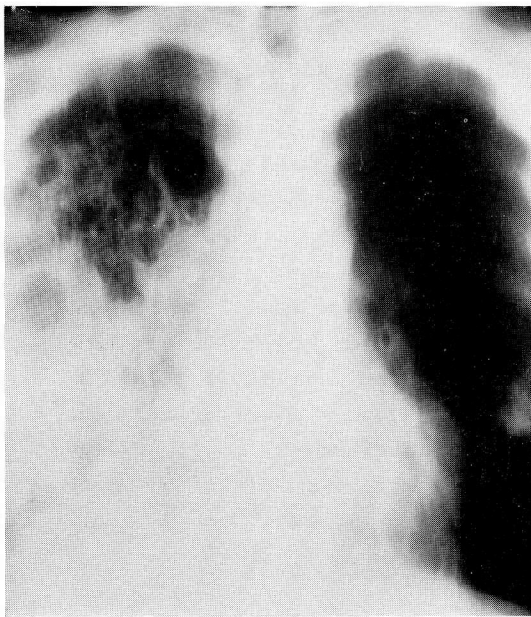


Fig. 6. 入院時胸部断層

上気道炎として抗生物質などを投与されたが軽快せず、 $38\sim 40^{\circ}\text{C}$ の弛張熱と咳が持続した。発症後約1カ月の胸部X線写真 (Fig. 1) で、右中下肺野を中心に広範なびまん性浸潤性陰影を発見された。肺炎を疑われ入院して、アセチルスピラマイシン、プリスタシン、グリペニン、セボランなど多種類の抗生物質による治療を受けたが軽快せず、診断的治療の目的でINH  $0.3\text{g}/\text{日}$ を約3週間投与したが反応せず発熱が持続した。盗汗が激しく、また発症3カ月で約10kgの体重減少がみられた。発症1カ月半頃からパチ状指と手背・足背部に浮腫が出現しはじめ、

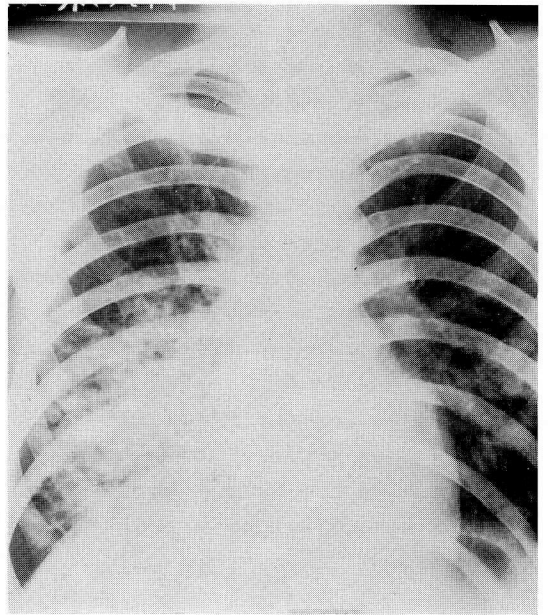


Fig. 8. 49年7月胸部正面

次第に著明となり、膝関節・足関節部の腫脹もみられ、四肢の運動制限を自覚するようになった。入院中の喀痰検査では原因菌と考えられるものは不明で、胸部X線写真でも改善がみられないため、発症5カ月後の49年3月27日当科へ転院した。発症後の経過は Fig. 2 に示すとおりである。

入院時現症：身長170cm、体重51kgで栄養は幾分不良であり、意識清明、体温 $37.6^{\circ}\text{C}$ 、脈拍90/分、整。脛結膜に貧血なく、球結膜に黄疸を認めない。表在リンパ節は触知しない。呼吸数20/分、整。聴診にて右下肺野

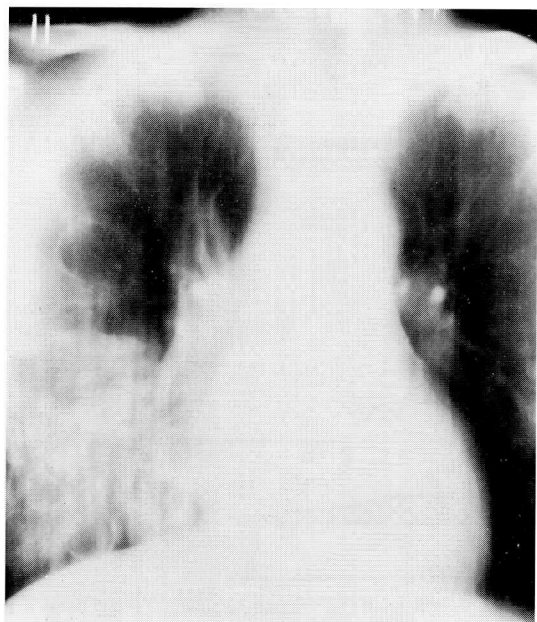


Fig. 9. 49年7月胸部断層

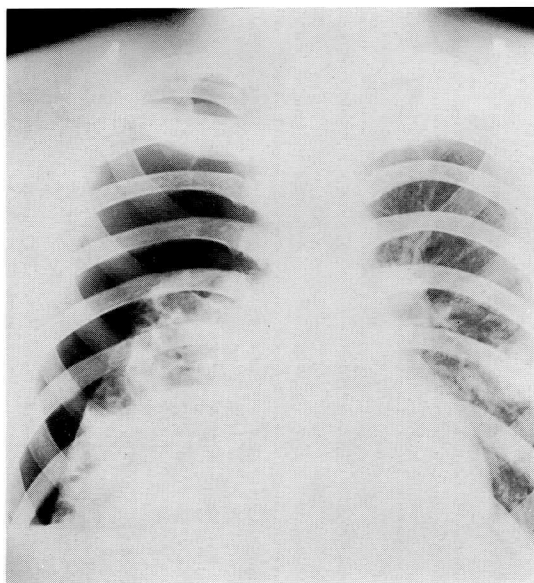


Fig. 10. 49年8月気胸発症後の胸部正面

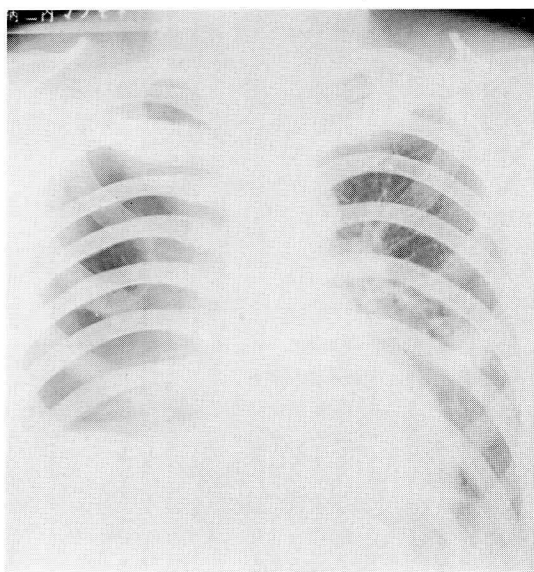


Fig. 12. 退院時胸部正面

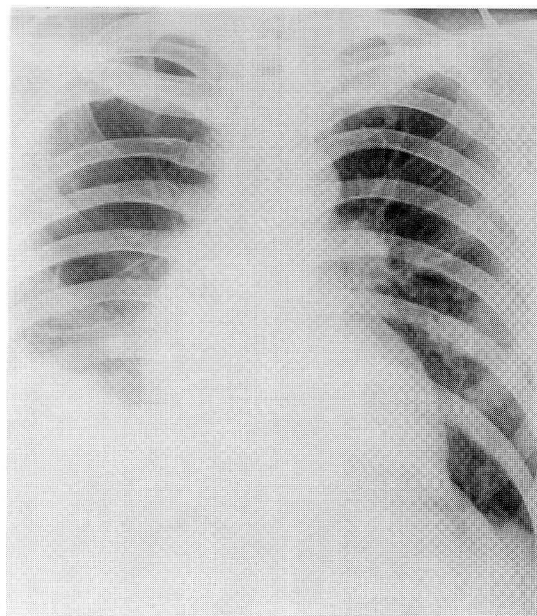


Fig. 13. 50年12月胸部正面

に広範に弱い水泡性ラ音が聴取され、打診にて同領域に中等度の濁音が認められた。肺肝境界第6肋間で、肝、脾は触知しない。四肢はバチ状指が著明で (Fig. 3)、両手背・足背部に浮腫が認められ、膝・足関節部が腫脹し (Fig. 4)、運動制限がみられた。表在静脈の怒張、チアノーゼなく、神経学的異常は認めなかつた。

入院時検査成績 (Table 1) : 尿・糞便に異常はなく、血沈 55 mm/1 時間で中等度に亢進し、白血球数 9,800 で核の左方移動が認められた。血液生化学検査では、LDH

261 mU/ml, Al-P 114 mU/ml, GOT 53, GPT 58 と軽度上昇しており、Ch-E 0.34  $\mu$ PH と低下していた。血清反応では、CRP 3+, RA  $\pm$  であり、その他は寒冷凝集反応などにも異常はみられなかつた。スパイロメトリーでは %VC 60%, FEV<sub>1</sub> % 80% であり、軽度の拘束性障害が認められたが、動脈血ガスは比較的正常に保たれていた。細菌学的検査では、喀痰の塗抹・培養をはじめ、胃液、咽頭粘液、経気管吸引液、血液、尿、糞便などを頻回に検索したが、原因菌と考えられるものは検出され

Fig. 2. 臨床経過

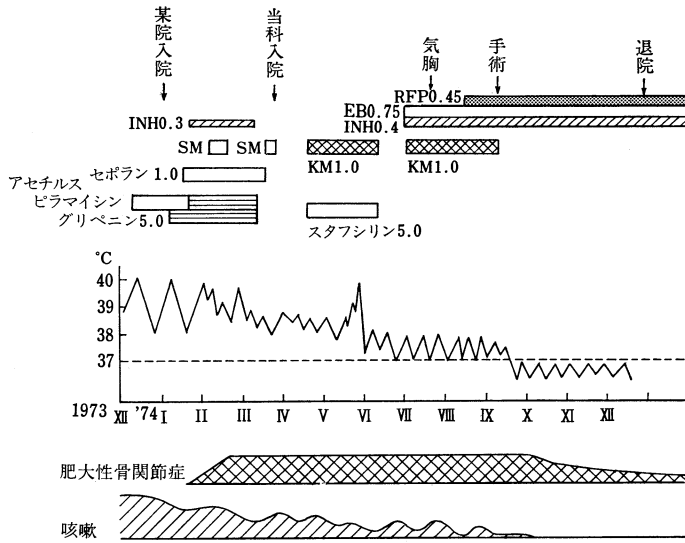


Table 1. 入院時検査成績

血沈	1時間 55 mm 2 " 97 "	Na	139 mEq/dl	スパイロメトリー	
末梢血		K	4.2 "	VC	2,880 ml
赤血球数	457 × 10 <sup>4</sup>	Cl	98 "	% VC	66%
Hb	13.3 g/dl	Ca	7.8 mg/dl	FEV <sub>1</sub>	2,300 ml
Ht	39%	P	4.3 "	FEV <sub>1</sub> %	80%
白血球数	9,800	Al-P	114 mU/ml	% MVV	65 "
桿状球	28%	LDH	261 "	動脈血ガス分析	
分葉核球	48 "	GOT	53 "	pH	7.54
好酸球	4 "	GPT	58 "	Pao <sub>2</sub>	79 mmHg
リンパ球	15 "	TTT	1.6 U	Paco <sub>2</sub>	37 "
単球	10 "	ZTT	6.0 "	[HCO <sub>3</sub> <sup>-</sup> ]	25.1 mEq/l
尿		Ch-E	0.34 ΔPH	SaO <sub>2</sub>	95.5%
糖	(-)	血清ビリルビン	0.4 mg/dl	細菌学的検査	
タンパク	(-)	タンパク分画		喀痰, 咽頭粘液	
ウロビリノーゲン	(正)	alb.	50.0%	TTA, 胃液	
沈渣 異常なし		gl. α <sub>1</sub>	4.4 "	血液, 尿, 便	
便		α <sub>2</sub>	15.3 "	以上より結核菌	(-)
虫卵	(-)	β	12.4 "	一般菌(-)または normal flora	
潜血反応	(-)	γ	17.9 "	その他の検査	
血液生化学		血清反応		ツ反	12 × 12
総タンパク	6.0 g/dl	CRP	3+	喀痰細胞診	class I
アルブミン	3.0 "	RA	(±)	PSP	15分 30%
BUN	8 mg/dl	ASLO	50 Todd	ICG	" 7.3 "
クレアチニン	0.5 "	梅毒血清反応	(-)	血清鉄	37 μg/dl
総コレステロール	199 "	寒冷凝集反応	1:128	" 銅	192 "
		Middlebrook-Dubos	1:4	ECG	異常なし

なかつた。入院時胸部平面写真 (Fig. 5) では、右中下肺野を中心に広範なびまん性浸潤影と左中肺野にも斑状の浸潤影が認められた。断層写真 (Fig. 6) では、右肺野の浸潤性陰影中に散在性に、空洞というよりは幾分壁の薄い

大小の囊胞状の陰影があり、一部には結核性空洞の可能性も考えられる陰影が認められた。また浸潤影中には細い気管支の透亮像もみられた。以上のような胸部X線所見より、囊胞状空洞形成を主体とする各種疾患が考えら



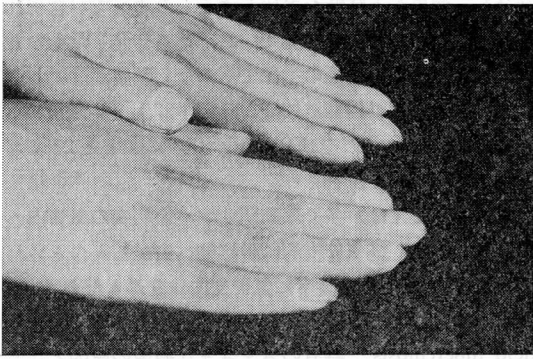


Fig. 3. 両手のパチ状指

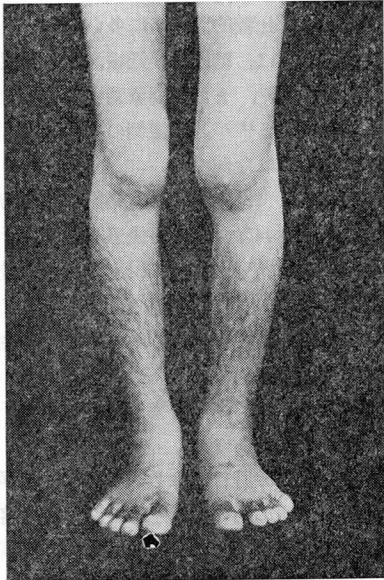


Fig. 4. 膝・足関節部の腫脹

れた。肺病変が広範であるにもかかわらず喀痰がほとんどなく、頻回の菌の検索でも結核菌は検出されず、また抗結核薬による診断的治療にも反応しないことなどから、結核の可能性は薄いと考えられた。結局上記経過より耐性ブドウ球菌性肺炎を疑い、 stafinilin と KM の併用療法を開始した。また四肢の異常所見 (Fig. 3, 4) については、はじめ関節リウマチや腎障害などの合併も疑ったが、四肢骨の X 線写真 (Fig. 7) で明らかに骨膜の肥厚が認められたため、パチ状指とともに肺性肥大型骨関節症の合併と考えた。治療開始後 2 カ月目に stafinilin によると考えられる発熱がみられたため中止した。発熱後 6 カ月目の 4 月中旬の胃液培養の結果 1~2 コロニーの微量の結核菌が検出されたので、INH, EB, KM 3 者に治療を変更した。しかし広範な肺病巣すべてを結核と断定するのは無理があると思われたので、非定形抗酸菌症の可能性も考えられた。7 月の胸部平面写真 (Fig. 8) では浸潤性陰影は減少して、更に多数の囊胞性陰影に変

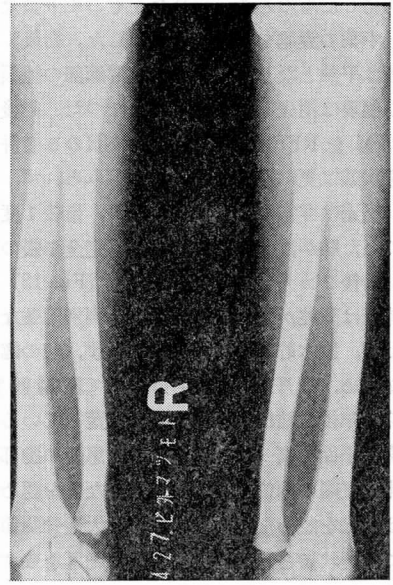


Fig. 7. 前腕骨の骨膜肥厚

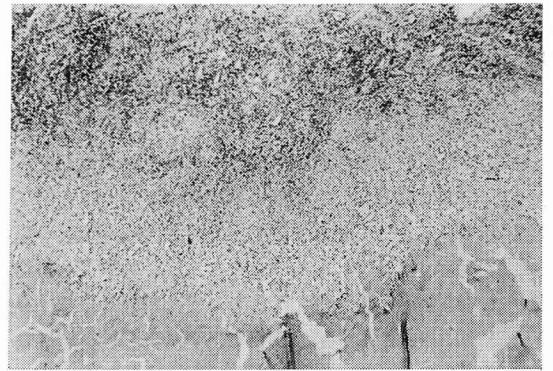


Fig. 11. 肺病巣の組織 (H・E 染色, ×40)

化しており、断層写真 (Fig. 9) で薄壁化した大小の囊胞が詳細に観察された。発熱も 37°C 台となり、全身状態も良好で、食欲もあり、体重も徐々に増加して全体的には改善の傾向にあると考えられた。しかし 7 月 26 日咳の発作とともに右気胸 (Fig. 10) を起こし、再三の脱気にもかかわらず虚脱をくり返したため、膿胸を起こす危険性も考えられ、また確定診断を得るためにも外科的療法が適当であると判断して、9 月 9 日日本学第 1 外科にて開胸した。

開胸所見は肉眼的にも結核性病変と考えられた。下葉全体が長期間の虚脱のためか、縮小して塊状となり、X 線写真で認められた多胞性の空洞は観察されなかつた。上中葉はほとんど正常の肺構造が保たれており、S<sub>2</sub>および中葉後面上部の臓側胸膜直下に大小の囊胞がみられ、これが気胸の原因と考えられた。また顕微鏡的にも、Ziehl-Neelsen 染色にて多数の菌を認め、組織学的 (Fig. 11) にも肺結核症と診断された。これら病巣の広りから

下葉に初発したものと考えられた。そこで下葉全体を切除し、上中葉の嚢胞を縫縮して閉胸した。術後1週間ほどで患者は平熱となり、1ヵ月後は関節部の腫脹も消失し、運動制限は消失して歩行可能となつた。術後の抗結核薬はKMをRFPに変え、EB、INHの3者併用とした。全身状態は更に改善して、排菌もみられず、血沈は安定し、経過は非常に良好であつたが、術後1度はよく膨張していた肺が次第に虚脱して、不完全膨張の状態となつた。術後2ヵ月目の胸部平面写真 (Fig. 12) では、右中下肺野は死腔かまたは巨大嚢胞か判別困難な像を呈していたが、胸水貯留の傾向もみられず、他の臨床症状も良好なため、12月末に退院し外来にて経過観察とした。退院1年後、結核病巣は完全に安定していると考えられ、胸部平面写真 (Fig. 13) にて、患側の胸郭の肋間隔の狭小化、縦隔の偏位、横隔膜の挙上などを認めるが、肺内には変化を認めなかつた。肺性肥大性骨関節症は、退院時にバチ状指と骨X線像に骨膜の肥厚を残すのみであり、1年後はバチ状指は軽度となり、X線像にて若干の骨膜の変化が認められた。

なお抗酸菌は同定の結果、定型的なヒト型結核菌と判明した。

## 考 察

本症例において肺結核症の診断が困難であつたのは、比較的急激に発症して、初期の胸部X線写真では右中下肺野を中心とした広範な肺炎を思わせる浸潤性陰影を呈し、結核菌は検出されなかつたこと、比較的早期から肺性肥大性骨関節症を合併したこと、また胸部X線像は経過とともに浸潤性陰影が空洞化し、更に多発性嚢胞性陰影に変化してきたことであつた。

これらの特異な臨床経過や胸部X線像の変化は、肺性肥大性骨関節症を除き、Herbertら<sup>1)</sup>の、いわゆる“lower lung field tuberculosis”に共通してみられるものである。1886年 Kidd<sup>2)</sup>による下葉にも結核は初発し、上部の区域が好発部位であるという報告にもかかわらず、肺結核病巣はかならず肺尖部から始まると考えられており、1922年 Fishberg<sup>3)</sup>の報告でも下葉の結核はきわめてまれとされた。しかし、1927年 Dunham ら<sup>4)</sup>、1928年 Colton<sup>5)</sup>により次々といわゆる“lower lung field tuberculosis”が報告されて以来、これらが上葉の結核と異なる共通の臨床像、X線像、病態像をもつことが注目され、特にその診断が困難なことは多くの報告者により述べられている。近年では1974年 Herbert ら<sup>1)</sup>により27例が報告されており、本症例はこれらにきわめてよく類似するものと考えられた。

Segarra ら<sup>6)</sup>は“lower lung field tuberculosis”を「胸部平面X線像で、肺門部を含む水平面より下方に発症した結核病巣」と定義しているが、多くの報告では下葉に

初発し、病巣が下肺野を主体とするものすべてが含まれており、本症例も開胸所見で、右下葉に初発したものと考えられ、下葉が病巣の主体であつた。頻度は Herbert ら<sup>1)</sup>によると活動性肺結核症386例中27例(7%)であつたが、Segarra ら<sup>6)</sup>や Fernandez ら<sup>7)</sup>によると2~4%と報告されている。

病因論としては、多くは肺門リンパ節病変の気管内への穿孔の結果、経気管支的に隣接肺へ広がるものとされており<sup>6,8)</sup>、このため高率に気管支内病変がもたらされ、これら病変による気管支の狭窄や閉塞が“lower lung field tuberculosis”特有のさまざまな病像の原因となるものと考えられている<sup>9)</sup>。これは初感染直後かまたは続発して起こることが多いと述べられており<sup>9,10)</sup>、そのためか本症例のごとく比較的若年者に多い<sup>6,10)</sup>。

発病の素因としては、糖尿病、妊娠、けい肺症などが報告されており<sup>6,7,8,11)</sup>、また長期療養中の患者や看護婦にも多いとされている<sup>11)</sup>が、本症例の場合、特に該当すると思えるものはなかつた。

主な臨床症状としては、咳93%、発熱82%、胸痛59%、血痰44%、体重減少44%、全身不快感33%、盗汗33%などが報告されており<sup>1)</sup>、上葉の結核とはほぼ同様である<sup>9,12)</sup>が、症状がより強いこと、発症の仕方が急激であることが特徴とされている<sup>9,10,14)</sup>。しかしウイルス性肺炎や細菌性肺炎より幾分緩徐である<sup>1)</sup>といわれる。

本症例の場合も、咳、高熱で突然発症し、盗汗が激しく、体重減少が著明であつた。

本症例は発症後1ヵ月目にはじめて胸部X線写真により肺炎を疑われ、原因菌の検索を行なつたが、喀痰中より結核菌は検出されず、その後の頻回な菌の検索にもかかわらず、発症後6ヵ月目の胃液培養で1~2コロニーの微量の結核菌を認めたにすぎなかつた。このように非常に菌の検出されにくいのが特徴とされており<sup>13,15,16)</sup>、これは気管支内病変による気管の狭窄ないし閉塞が、肺実質の病巣との交通性を乏しくするためと考えられている。これが結核症の診断を困難とし、多くの報告でも発症から4~6ヵ月でようやく確定診断が得られている<sup>6,10)</sup>。喀痰で菌が検出されない場合、気管支鏡による洗浄液の培養および直後の喀痰の検索が有効なことがあるとされている<sup>16)</sup>。

“lower lung field tuberculosis”の胸部X線像は、本症例のごとく acinar shadow は著明でなく、広範な充実性の癒合した病変を呈し、また気管支内病変が高度な場合、浸潤性陰影中に狭窄した気管支の透亮像が認められることがある。つまりX線像は、肺結核病変よりむしろウイルス性肺炎や細菌性肺炎に似ているといわれ<sup>6,10)</sup>、Herbert ら<sup>1)</sup>の27例中16例がX線像で肺炎を疑われて入院したものであつた。

病巣の部位については、多くの研究者によると下葉の

上部の区域が多いとされているが<sup>9)17)18)</sup>、本症例の場合、発見時にはすでに下葉全体にわたる広範な病巣であつた。また左右肺を比較すると、Romendick ら<sup>12)</sup>によると58%が、Parmar ら<sup>9)</sup>によると69%が右肺であり、両側は少ないと報告されている。本症例の場合、左肺にも小さな病巣がみられたが、主体は右肺であつた。

本症例のX線像のもつとも特異と考えられたのは、多発性空洞とその薄壁嚢胞化である。Johnsonら<sup>10)</sup>によると上葉の結核に比べて早期に空洞を形成しやすく、緊張性となり、大きな薄壁空洞となる傾向があると述べられている<sup>9)10)19)</sup>。空洞の大きさは直径3~4cmが多く<sup>10)19)</sup>、内腔に液体が認められる頻度が上葉のものに比べて高いといわれる<sup>9)11)20)</sup>。また空洞の数は1個の場合が多く<sup>6)15)</sup>、本症例のごとく多発している例の報告はみられない。病巣が非常に広範であつたため多発したものと考えられた。

本症例における肺性肥大性骨関節症の合併は、発症後約1カ月半でバチ状指が出現し、2カ月で四肢関節部が腫脹して、3カ月目には骨X線像で骨膜の肥厚が認められた。肺性肥大性骨関節症は、1890年 Marie<sup>21)</sup> および1891年 Bamberger<sup>22)</sup> により慢性肺疾患に伴う骨関節の疾患として報告され、その後肺疾患に限らず慢性心疾患、慢性中毒症、伝染病や悪性腫瘍に続発することが報告されている<sup>23)</sup>。しかし1958年 Skornekら<sup>24)</sup>の報告によると、本症例のごとく肺結核症への合併はきわめてまれとされている。

### おわりに

比較的急激に発症し、肺性肥大性骨関節症を合併して、胸部X線像は初め広範な浸潤性陰影で、経過とともに多発性嚢胞性陰影に変化し、手術により肺結核症と診断された症例で、いわゆる“lower lung field tuberculosis”に類するものと考えられたので、若干の考察を加えて報告した。

### 文 献

- 1) Herbert, W.B. and Margarito, G.G.: Chest, 65: 522, 1974.
- 2) Kidd, P.: Lancet, 2: 615, 1886.
- 3) Fishberg, M.: Am. Rev. Tuberc., 17: 1, 1928.
- 4) Dunham, K. and Norton, V.V.: J. A. M. A., 89: 1573, 1927.
- 5) Colton, W.A.: U.S. Vet. Bur. M. Bull., 4: 503, 1928.
- 6) Segarra, F., Sherman, D.S. and Rodriguez-Aguero, J.: Am. Rev. Resp. Dis., 87: 37, 1963.
- 7) Fernandez, M.Z. and Nedwicki, E.G.: Mich. Med., 68: 31, 1969.
- 8) Andosca, J. B. and Foley, J. A.: J. Thorac. Surg., 12: 259, 1943.
- 9) Parmar, M.S.: Am. Rev. Resp. Dis., 96: 310, 1967.
- 10) Pratt-Johnson, J.H.: Br. J. Dis. Chest, 53: 385, 1959.
- 11) Reisner, D.: Arch. Intern. Med., 56: 258, 1935.
- 12) Romendick, S.S., Friedman, B. and Shwartz, H.F.: Chest, 10: 481, 1944.
- 13) Hamilton, C.E. and Fredd, H.: J. A. M. A., 105: 427, 1935.
- 14) Chowdhury, J. R.: J. Indian Med. Assoc., 38: 524, 1962.
- 15) Sokoloff, M.J.: Radiology, 34: 589, 1940.
- 16) Gordon, B.L., Charr, R. and Sokoloff, M.J.: Am. Rev. Tuberc., 49: 432, 1944.
- 17) Ossen, E.Z.: N. Engl. J. Med., 230: 693, 1944.
- 18) Rothstein, E.: Am. Rev. Tuberc., 59: 39, 1949.
- 19) Vivas, J.R. and Laubach, C.A., Jr.: Am. Rev. Tuberc., 60: 15, 1949.
- 20) Weidman, W.H. and Campbell, H.B.: Am. Rev. Tuberc., 36: 525, 1937.
- 21) Marie, P.: Rev. Med. Paris., 10: 1, 1890.
- 22) Bamberger, E.: Z. Kin. Med., 18: 193, 1891.
- 23) Yacoub, M.H., Simon, G. and Ohnsorge, J.: Thorax, 22: 226, 1967.
- 24) Skornek, A.B. and Ginsburg, L.B.: New Eng. J. Med., 258: 1079, 1958.