

長期携帯型気胸ドレナージ治療が有効であった MACによる難治性気胸の1例

内田 賢典 柿崎有美子 宮下 義啓

要旨：症例は20年来のリウマチ肺に対するステロイド治療を行っていた67歳の男性。発熱，息切れ，胸痛を主訴に受診し，肺炎を伴う右気胸の診断で胸腔ドレナージが施行された。喀痰，胸水から *Mycobacterium intracellulare* が同定され，同菌による肺炎，胸膜炎の診断でCAM，RFP，EBの3剤併用療法が導入された。右肺の虚脱は遷延し，胸膜癒着術の効果は見込めず，間質性肺炎急性増悪のリスクなどがあり，この時点で外科的治療を行うのは危険性が高いと判断された。持続する気胸に対し，ADLを維持する目的で携帯型気胸ドレナージキットを用い外来管理を行った。その後，2度にわたるEWSの留置で気胸の改善を図ったが，改善は得られなかった。6カ月間の抗酸菌症治療後の手術にて気胸は改善した。今回われわれは肺非結核性抗酸菌症による気胸の外来管理を継続することでADLを維持しつつ，手術につなげられた貴重な症例を経験した。MACに対する薬物療法は長期にわたり，MACによる難治性気胸に対し外来でのドレナージの継続はADLを維持するためにも有効であると考えられたため報告する。

キーワード：肺非結核性抗酸菌症，気胸，携帯型気胸ドレナージキット，関節リウマチ，間質性肺炎

緒 言

肺非結核性抗酸菌症（以下，肺NTM症）患者は近年増加しており，稀とされていた胸膜炎，気胸の合併例の報告も増加している¹⁾。肺NTM症に胸膜炎，気胸が合併した場合，肺病変が高度であるためか，その予後は不良であると報告されている²⁾。また，肺の硬化をきたす間質性肺炎に気胸をきたした場合，特にステロイドが加わっていると肺の虚脱が遷延することが多い³⁾。今回われわれはステロイド加療中のリウマチ肺に続発した肺 *Mycobacterium avium-intracellulare* complex 症（以下，肺MAC症），同菌による難治性気胸症例に対し，外来で長期のドレナージ管理を行い，根治的な手術につなげた貴重な症例を経験したため報告する。

症 例

患 者：67歳，男性。

主 訴：胸痛，息切れ，発熱。

既往歴：47歳より関節リウマチ，リウマチ肺。

家族歴：特記すべきことなし。

生活歴：喫煙歴は1日20本を24年間。

飲酒歴：なし。アレルギー歴：なし。

現病歴：47歳頃発症のリウマチ肺で近医へ通院し，1日15mgのプレドニゾロン，1.5mgのタクロリムスでの加療と，Sulfamethoxazole/Trimethoprim 1錠の予防内服を受けていた。数日前から発熱があり，201x年12月中旬，突然の胸痛とともに息切れが出現した。翌朝に近医を受診し，気胸が疑われ，当院へ紹介搬送となった。

現 症：身長169cm，体重65.7kg，体温38.5℃，血圧133/84mmHg，脈拍127/min・整，経皮的動脈血酸素飽和度（SpO₂）93%（鼻カニユレ3L O₂吸入下），呼吸数24回/min。意識清明。右肺呼吸音の減弱を認める。

検査所見（Table）：白血球数は8,800/ μ Lと軽度上昇し，LDHは345 IU/L，CRPは11.94 mg/dL，KL-6は763.2 U/mLと上昇していた。

画像所見：胸部X線写真では，右肺の虚脱を認めた

Table Laboratory findings

Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	8,800 / μ L	Alb	3.4 g/dL	CRP	11.94 mg/dL
Neut	80 %	T-Bil	1.39 mg/dL	KL-6	763.2 U/mL
Lymp	10 %	AST	24 IU/L	PCT	0.089 ng/mL
Eos	0 %	ALT	15 IU/L	MMP-3	124 ng/mL
Mono	10 %	LDH	345 IU/L	anti-CCP	5.7 U/mL
RBC	496×10^4 / μ L	ALP	349 IU/L	Aspergillus antigen 0.2	(-)
Hb	14.1 g/dL	BUN	17.8 mg/dL	T-spot	(-)
Hct	43.4 %	Cre	0.68 mg/dL		
Plt	13.5×10^4 / μ L	Na	135 mEq/L		
		K	4.3 mEq/L		
Pleural effusion					
Color	orange yellow	WBC	18.2×10^3 / μ L	TP	7.7 g/dL
Turbidity	(+)	Neut	66 %	LDH	1797 IU/L
Bacterium	(-)	Lymp	24 %	Glu	50 mg/dL
AFB smear	2+	Mono	1 %	CEA	12.4 ng/mL
AFB culture	+			CA19-9	172.5 U/mL
<i>Mycobacterium intracellulare</i> PCR	+			ADA	65.5 IU/L



Fig. 1 Chest X-ray showing collapse of right lung and left displacement of mediastinal.

(Fig. 1)。トロッカーカテーテル（以下、ドレーン）挿入後の胸部CTでは、右気胸は遷延し、縦隔は左方に若干偏位しており、2014年の撮影時より蜂巢肺が拡大していた。右下肺末梢には空洞を有する consolidation が拡がり、感染症の合併が疑われた (Fig. 2)。

入院後治療経過：入院時より右胸腔に18Frのドレーンを挿入し、吸引圧 -8 cmH₂Oにて胸腔ドレナージを開始した。また、肺炎の合併が疑われ、セフトリアキソン2 g/日の点滴治療を開始した。入院翌日に提出した胸水の抗酸菌塗抹検査が2+と判明し、PCR検査で*M. intracellulare*が陽性となり、1週間後に培養で検出された。また、喀痰検査でも同菌が2回塗抹・培養で検出された。胸部CTで確認された胸膜直下に存在する空洞性病変と併せ、肺MAC症の胸腔内穿破による膿胸、気胸と診断した。第6病日よりクラリスロマイシン (CAM)、リファンピシ

ン (RFP)、エタンブトール (EB) 3剤による肺MAC症の加療を開始した。エアリークは持続し、右肺の虚脱は遷延したため、胸膜癒着術の効果は見込めなかった。間質性肺炎急性増悪のリスクなどがあり、中等量のステロイドを長期に内服していたことから、この時点で外科的治療を行うことは危険性が高いと判断され、保存的治療を継続する方針とした。Endobronchial Watanabe spigots (EWS) の留置も検討されたが、EWSの留置で感染のコントロールが悪化する懸念もあり、施行を見送った。全身状態は比較的良好で、長期に及ぶ通院加療を想定し、携帯型気胸ドレナージキット（以下、携帯ドレーン）を装着して第34病日に退院となった。

外来での治療経過：約1週間の間隔で、ドレーンの管理を行った。胸水量の減少、胸水抗酸菌塗抹陰性化などから感染がコントロールされたものと判断し、発症から3カ月後と5カ月後の2回、EWSの留置で気胸の改善を図ったが、改善は得られなかった。長期に及ぶ保存的加療と2度のEWSで気胸の改善を得られず、炎症所見は低値を維持し、ADLも維持していたことから、感染のコントロールは継続してついていると判断された。携帯ドレーンでのドレナージを手術直前まで継続したうえで、発症6カ月後に肺MAC症に続発した気胸に対し、待機的に胸腔鏡補助下右胸腔内搔爬、右肺下葉部分切除術を施行した。

手術所見 (Fig. 3 (a))：胸腔内は胸膜が厚く肥厚し醗膿膜を形成していた。リークテストでは下葉の抗酸菌感染巣の荒廃した表面よりエアリークを認めた。触診にて下葉のほとんどが固く、機能が廃絶していると判断し、下葉を部分切除した。24Frダブルルーメンの胸腔ドレーンを肺尖部、肺底部に2本留置し、閉胸し手術終了とした。

病理所見 (Fig. 3 (b))：右肺下葉の切除検体では柵状の

類上皮細胞層に囲まれた壊死層が多数散在し、Langhans巨細胞も散見された。周囲にはリンパ球主体の炎症細胞を認め、細気管支上皮化生も伴っていた。抗酸菌染色では数カ所で菌が確認でき、肺MAC症として矛盾しなかった。切除検体は大部分がMACにより侵されていた。

術後8日でドレーンを抜去し、術後9日で呼吸不全を残さず退院となった。退院後1週間で*Staphylococcus epidermidis*による術後膿胸をきたし再入院となったが抗菌薬加療で軽快した。術前 (Fig. 4 (a)) と比較した術後34日の胸部X線写真をFig. 4 (b)に示す。右肺の完全拡張は得られなかったが、術後8カ月経過時点でも呼吸不全もなく通院中である。

考 察

本症例はリウマチ肺が基礎にあり、右肺底区の胸膜直下に大きい空洞が形成されていたこともあり、MACの感染による病変が進行して気胸に至ったものと考えられた。ステロイド、免疫抑制剤での治療も行われており、①感染症のリスク、②間質性肺炎の急性増悪のリスクのいずれも考慮する必要があった。気胸の改善、感染のコントロールにはステロイドの減量が望ましいが、ステロイドの減量が致命的な間質性肺炎急性増悪につながりかねず、また肺MAC症の薬物療法が十分に行われていない状態での手術治療も術後の感染症の増悪リスク、間質性肺炎急性増悪のリスクが高いと考えられた。難治性気胸に対するEWS充填術が有用であったとする報告が散見されるが⁴⁾、本症例では待機的に2度にわたるEWS充填術を施行したものの、気胸の改善は得られなかった。術後の病理所見では広範囲の崩れた胸膜が確認されており、胸膜病変が広範囲である場合、瘻孔に至る気管支が複数ある場合にはEWSでの気胸の治療は困難なのかもしれない。術前に3~6カ月程度の化学療法を行うべきとの指針があり⁵⁾、本症例は薬物療法の前治療を行い、ADLを維持するために外来管理とし、感染症のコントロールが可能となった。長期携帯型気胸ドレーン治療は気胸の悪化を阻止し、活動可能とすることでADLを維持することに有効で、なおかつ長期の薬物療法を可能にするという点でMAC症に対しても有効であった。侵襲的な処置への移行に外来での継続した気胸の管理が重要であると言える。

肺NTM症に続発した胸膜炎、気胸は今後増加することが予想され、難治性である。携帯ドレーンは気胸の外来治療でその有効性が報告されている⁶⁾が、もともと外科的治療に先行して行う治療で、既報では長い場合でも14日間の待機期間の後に効果不十分であれば入院でのドレーン管理に変更している⁷⁾。皮下気腫、出血、感染、呼吸状態の増悪、再膨張性肺水腫、チューブの折れ曲が

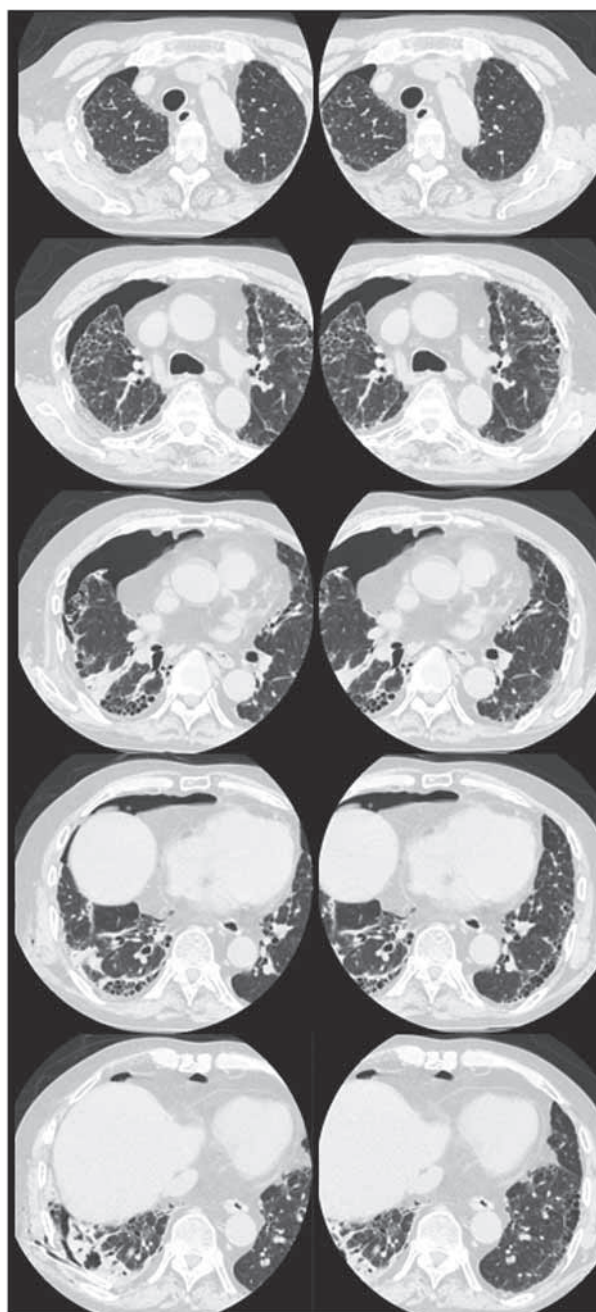


Fig. 2 Chest computed tomogram after trocar catheter insertion showing highly fibrous lesions and cavity lesions in the right lung bottom district.

りによる閉塞、自然抜去、装置の破損などの危険もあり、そもそも携帯ドレーンを長期に留置することは勧められていなかった⁸⁾。加えて、MACによる難治性気胸の場合は薬物療法に対する反応も時間を要すると考えられ²⁾、携帯ドレーンでのドレーンにより気胸が改善することも難しいと予測された。しかし、24時間対応可能な外来の体制、毎週のドレーンメンテナンス、理解力のある患者に対する感染対策、ドレーンの扱いなどの十分な患者教育があれば、本症例のような即座の手術が困難である症例であっても6カ月もの外来管理が可能となる。全身

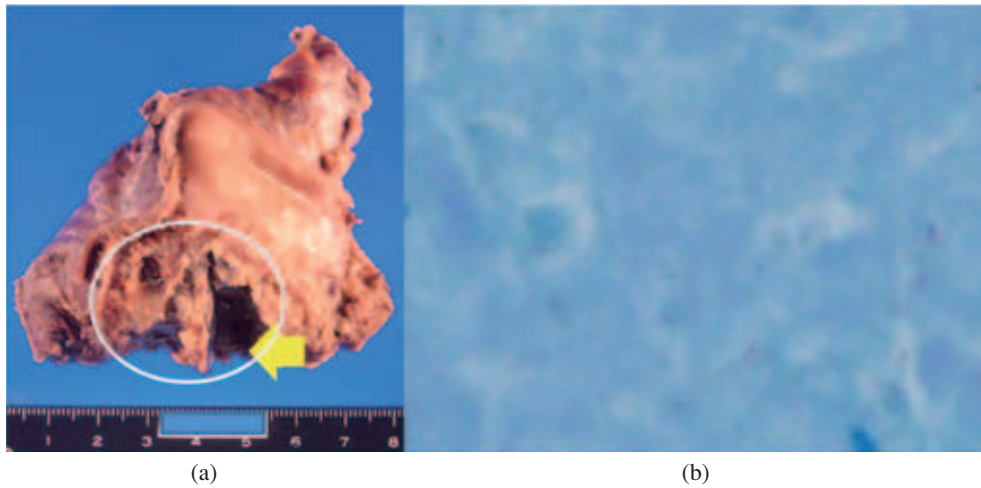


Fig. 3 Pulmonary resection specimen. (a) Macro photo of the resected right lung basal segment. Collapsed pleura (circle point) were observed, and the point was recognized as the air leak points. Arrow was the part that was cut out of the specimen. (b) Red bacterial bodies were observed in Ziehl-Neelsen staining.

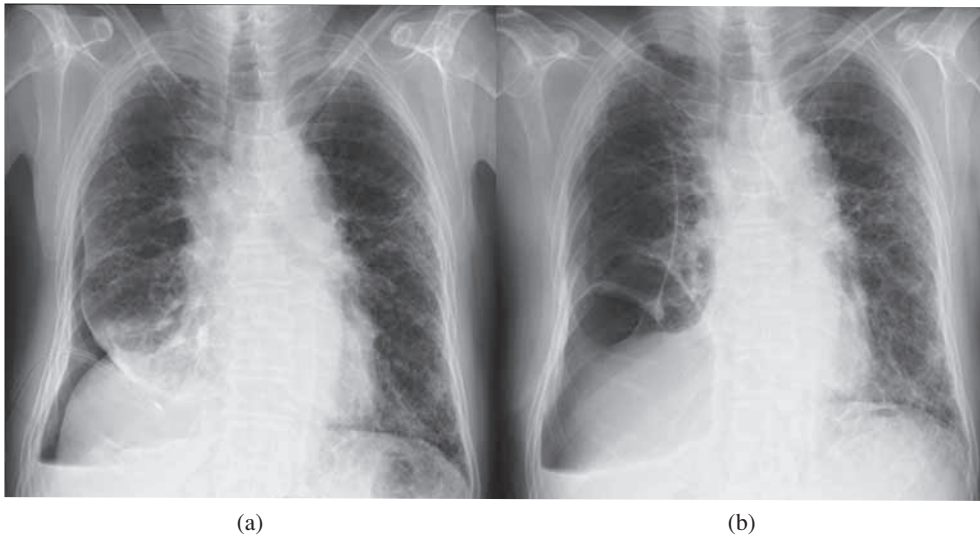


Fig. 4 (a) Chest X-ray of the day before surgery showing collapsed right lung despite the continuation of drainage. (b) After surgery 34 days, chest X-ray after postoperative empyema healing showing collapsed right lung.

状態が保たれており、根治的な処置まで時間を要する場合においても、携帯ドレーンを有効利用することで治療を成功させる一助となるものと考えられた。

謝辞：手術を施行していただいた当院呼吸器外科 後藤太一郎先生，病理診断にご協力いただいた当院病理診断科 小山敏雄先生に深謝いたします。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

文 献

- 1) 佐渡紀克, 中村保清, 北 英夫: 肺非結核性抗酸菌症に合併した胸膜炎の臨床的検討. 結核. 2014; 89: 821-824.
- 2) Hagiwara E, Komatsu S, Nishinohara R, et al.; Clinical characteristics and prevalence of pneumothorax in patients with pulmonary *Mycobacterium avium* complex disease. J Infect Chemother. 2013; 19: 588-592.
- 3) 井上幸久, 古家 正, 小野 宏, 他: 続発性気胸を合併した間質性肺炎の臨床的検討. 日呼吸会誌. 2010; 48: 724-728.
- 4) 井上祐一, 近藤 晃, 泊 慎也, 他: 肺非結核性抗酸菌症に合併した難治性気胸に対するEWSの使用経験—

- キュレットを使用したEWS充填の有用性について. 気管支学. 2012; 34: 442-449.
- 5) 日本結核病学会非結核性抗酸菌症対策委員会: 肺非結核性抗酸菌症に対する外科治療の指針. 結核. 2008; 83: 527-528.
- 6) 中村治彦, 神尾重則, 山田哲司, 他: 自然気胸の治療成績—特にハイムリッヒ弁使用による外来治療について. 日胸疾会誌. 1986; 24: 1253-1257.
- 7) 江花弘基, 栗原正利, 片岡秀之, 他: Thoracic Egg®を用いた自然気胸に対する外来ドレナージ療法の評価. 日救急医学会誌. 2011; 22: 803-809.
- 8) 竹下伸二, 村松 高, 四万村三恵, 他: 自然気胸に対するソラシクエッグ®挿入症例の検討. 日呼外会誌. 2011; 25: 363-366.

————— Case Report —————

A CASE OF REFRACTORY PNEUMOTHORAX ASSOCIATED WITH
MYCOBACTERIUM INTRACELLULARE WHICH WAS CURED BY SURGERY
AFTER LONG-TERM DRAINAGE AND ANTIBIOTICS THERAPY

Yoshinori UCHIDA, Yumiko KAKIZAKI, and Yoshihiro MIYASHITA

Abstract A 67-year-old man with rheumatoid lung was admitted to our hospital because of fever, dyspnea and chest pain. Right-sided pneumothorax was recognized on a chest radiograph, and chest tube drainage was performed. A result of smear of the pleural fluid was positive. *Mycobacterium intracellulare* was identified by PCR method from the organisms of sputum and pleural fluid specimens. Pneumothorax and pleuritis were improved with percutaneous tube drainage and anti-nontuberculous mycobacteriosis (NTM) chemotherapy. But right-sided lung pneumothorax was not cured completely. A portable pneumothorax drainage kit during an outpatient stay and continued chemotherapy were effective for keeping his general condition. Endobronchial Watanabe spigots (EWS) procedure was failed to treat the pneumothorax in this case. Finally, surgical therapy was

performed, and pneumothorax was improved. A portable pneumothorax drainage kit during outpatient stay for six months was useful for keeping general condition.

Key words: Pulmonary nontuberculous mycobacteriosis, Pneumothorax, Portable pneumothorax drainage kit, Rheumatoid arthritis, Interstitial pneumonia

Department of Respiratory Medicine, Yamanashi Prefectural Central Hospital

Correspondence to: Yoshinori Uchida, Department of Respiratory Medicine, Yamanashi Prefectural Central Hospital, 1-1-1, Fujimi, Kofu-shi, Yamanashi 400-8506 Japan.
(E-mail: uchida-bfvw@ych.pref.yamanashi.jp)

