

病巣穿破による大量吐血と気管内炎症性ポリープからの血痰を認めた縦隔リンパ節結核・粟粒結核の1例

¹大内 政嗣 ¹井上 修平 ¹尾崎 良智 ¹藤田 琢也
²花岡 淳

要旨：症例は左腎結核手術の既往がある62歳、男性。不明熱に対してステロイド剤投与を開始後、胸部X線、CTで両肺に粒状影が出現、血痰も認められ、喀痰抗酸菌塗抹陽性と判明し当院転院となった。CTで両肺びまん性小粒状影、石灰化を一部に有する縦隔リンパ節腫大とリンパ節内に気体の存在が認められた。粟粒結核、縦隔リンパ節結核と診断し、INH・RFP・EB・PZAによる標準治療を開始した。第11病日に突然の大量吐血があり、上部消化管内視鏡検査を施行したが、出血部位の同定が不可能であり、絶食、経鼻胃管、輸血療法で症状は改善していた。第30病日に下血と貧血の進行が認められたため、再度内視鏡検査を行い、食道に壁外性の腫瘤と粘膜の裂孔が観察された。CT所見とあわせて縦隔リンパ節結核病巣の食道への穿破と診断した。また血痰の精査のために施行した気管支鏡検査でも気管左壁に炎症性ポリープが認められた。その後は抗結核薬治療の継続で症状は改善した。縦隔リンパ節結核病巣が播種源となり、晩期蔓延型の粟粒結核に進展したものと考えられた。本症例は上部消化管内視鏡検査および気管支鏡検査で縦隔リンパ節結核病巣の食道への穿破部位と気管内炎症性ポリープを観察しえた稀な症例であった。縦隔リンパ節結核の経過中に、消化管出血、気道出血が認められた場合やCTでリンパ節に気体の存在がみられた場合には内視鏡検査を行う必要があると考えられた。

キーワード：リンパ節結核、粟粒結核、リンパ節結核穿破、気管内炎症性ポリープ、食道出血、気道出血

はじめに

縦隔リンパ節結核は症状に乏しく診断に苦慮することが多い。縦隔リンパ節結核は結核症例の0.028~0.18%とされており、稀に食道、気管、気管支、大動脈などの近接臓器へ病変が進展し瘻孔を形成し、重篤な症状を呈することがある。

今回、われわれは粟粒結核を合併し、縦隔リンパ節病巣の食道への穿破により大量の消化管出血を呈し、気管内に血痰の原因となる炎症性ポリープが観察された症例を経験したので報告する。

症 例

症 例：62歳、男性。

主 訴：発熱、咳嗽、血痰。

現病歴：2008年12月上旬より39℃の発熱が出現し、近医を受診した。抗生剤の投与を受けたが解熱せず、不明熱として経過観察されていた。肝障害も出現し、2009年1月には咳嗽もみられるようになった。成人Still病を疑われ、プレドニゾロン10mg/日の内服を開始され、発熱および肝障害は一時改善したが、1月中旬には再度発熱し、血痰も認めるようになった。胸部X線で両肺に粒状影を認め、喀痰検査で抗酸菌塗抹検査陽性と判明し、1月下旬に当科紹介、転院となった。

¹独立行政法人国立病院機構滋賀病院呼吸器外科、²国立大学法人滋賀医科大学呼吸器外科

連絡先：大内政嗣，独立行政法人国立病院機構滋賀病院呼吸器外科，〒527-8505 滋賀県東近江市五智町255

(E-mail: ohuchi-masatsugu@shiga-hosp.jp)

(Received 18 Jun. 2011/Accepted 15 Aug. 2011)

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：18歳時に左腎結核に対して左腎摘出術（内服治療歴は不明）。高血圧症。

喫煙歴：20本/日×36年（20～56歳）。

職業歴：粉塵およびアスベスト等の曝露歴なし。

入院時現症：身長174.6 cm，体重72.4 kg，体温39.1℃，脈拍105/分，血圧145/75 mmHg，呼吸数15/分，SpO₂ 96%。表在リンパ節は触知せず。肺音清，左右差なし。その他特に異常所見は認められなかった。

検査所見（Table）：入院時の喀痰抗酸菌塗抹検査陽性（G2号），結核菌PCR検査陽性であった。クオンティフェロン®TB-2G（QFT-2G）も陽性であった。生化学検査で肝胆道系酵素の上昇を認め，HbA1c値は6.40%と上昇していた。

胸部X線所見（Fig. 1A）：両肺野びまん性に小粒状影，微細粒状影を認めた。

胸部CT検査所見（Fig. 1B, C, D, E）：両肺野に小粒状影が認められたが，明らかな気管支拡張や空洞性病変

Table Laboratory data on admission

(Hematology)		(Blood Chemistry)		(Tumor markers)		(Sputum)	
RBC	460×10 ⁴ /μl	TP	7.0 g/dl	CEA	4.0 ng/ml	Culture: normal flora	
Hb	14.4 g/dl	Alb	3.3 g/dl	CA19-9	18.9 U/ml	Mycobacterium	
Ht	40.9 %	T-Bil	1.0 mg/dl	SCC	0.8 ng/ml	Smear: positive	
WBC	7210 /μl	GOT	84 IU/l	SLX	29 U/ml	Gaffky 2	
Neut	77.3 %	GPT	225 IU/l	NSE	10.1 ng/ml	PCR=TB	
Lymp	14.0 %	LDH	195 IU/l	proGRP	12.3 pg/ml	Cytology: negative	
Mono	8.6 %	ALP	689 IU/l	Cyfra21-1	2.0 ng/ml	QFT: positive	
Eos	0.0 %	γ-GTP	437 IU/l			ESAT-6	7.98 IU/ml
Baso	0.1 %	CPK	42 IU/l	(Serology)		CFP-10	8.36 IU/ml
Plt	21.6×10 ⁴ /μl	Amy	88 IU/l	CRP	0.72 mg/dl		
		Glu	119 mg/dl	RF	5 U/ml		
		BUN	25 mg/dl	ANA	×40		
(Coagulation)		Cre	1.41 mg/dl	IgG	2087 mg/dl		
PT	12.0 s	Na	132 mEq/l	IgA	250 mg/dl		
APTT	36.9 s	K	4.5 mEq/l	IgM	86 mg/dl		
		Cl	98 mEq/l				
		T-Cho	193 mg/dl				
		TG	232 mg/dl				
		HbA1c	6.40 %				

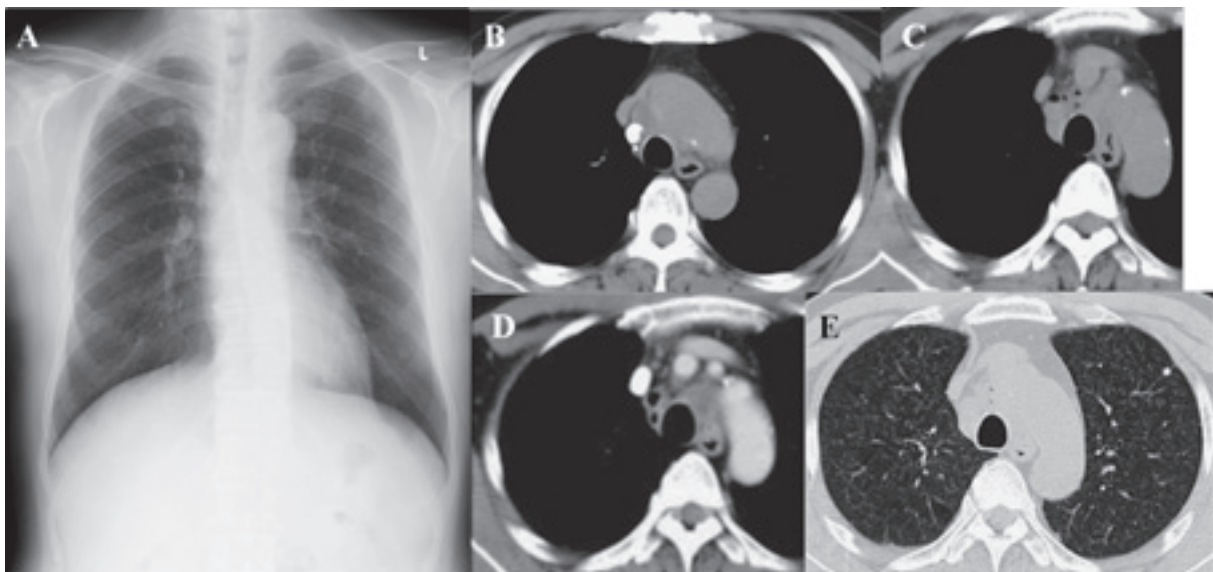


Fig. 1 Chest radiograph on admission showed diffuse miliary shadows in the bilateral lung fields (A). Chest computed tomographic (CT) scanning revealed mediastinal lymph nodes enlargement with partial calcification and air in these lymph nodes (B, C). Contrast-enhanced CT scans showed these nodes containing central low attenuation and peripheral enhancement in left paratracheal area (D). High resolution CT revealed diffuse granular shadow and calcified nodule in the left upper lobe (E).

は認められなかった。左肺上葉S¹⁺²の胸膜直下に石灰化を伴う小結節を認めた。上縦隔のリンパ節が腫大しており、一部のリンパ節に石灰化がみられた。両側の気管傍リンパ節および左気管支リンパ節内には気体が存在していた。造影CTではリンパ節の辺縁部は造影されるものの、内部は不均一な低濃度域を示していた。

入院後経過：以上より粟粒結核、リンパ節結核と診断し、イソニアジド (isoniazid: INH) 300mg/日+リファンピシリン (rifampicin: RFP) 450 mg/日+エタンブトール (ethambutol: EB) 750mg/日+ピラジナミド (pyrazinamide: PZA) 1.5g/日を投与開始した。当院入院後の所見から成人Still病の可能性は低いと判断し、前医より投与されていたプレドニゾロン (prednisolone: PSL) を5 mg/日に漸減した。

副作用なく経過していたが、入院後第11病日未明に突然、大量の吐血を認めた。凝血塊を含んだ鮮血の吐血が約300 mlあり、血圧低下、頻脈を呈した。直ちに経鼻胃管を挿入し、冷水で胃洗浄するものの鮮血の流出が持続するため、エピネフリン0.5 mg、トロンビン1万単位の注入とオメプラゾールの静脈内投与を行った。その後、緊急上部消化管内視鏡検査を行ったが、凝血塊と食物残渣のため出血点を同定することはできなかった。輸液と6単位の赤血球濃厚液の輸血を行い循環動態は安定し、絶食、経鼻胃管留置のまま経過観察とした。抗結核薬の投与も一時中止とし、転院後の経過からも成人Still病を疑う所見に乏しく、PSLの投与も中止とした。吐血翌日(第12病日)には胃管からの出血は認められず、再度内視鏡検査を行った。凝血塊が胃内に残存していたため

胃内は十分に検索しえず、また食道にも病変を認めることはできなかった。

その後も経鼻胃管の排液の性状から活動性の出血を疑う所見は見られなかったため、吐血後5日目(第16病日)より経口摂取を開始し、第20病日から抗結核薬を再開した。また、少量の血痰が入院時から認められていたため、第28病日に気管支鏡検査を施行すると、気管分岐部より約1.5 cm口側の気管左壁にポリープ状の隆起性病変が認められた(Fig. 2)。柔らかい易出血性の病変であり、病理組織学的検査で炎症性ポリープと診断した。なお、肉芽腫病変は認められなかった。第30病日に黒色便と

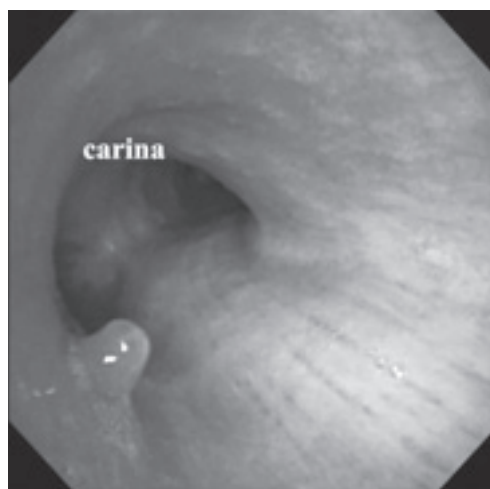


Fig. 2 Bronchoscopy showed an inflammatory polyp in the trachea.

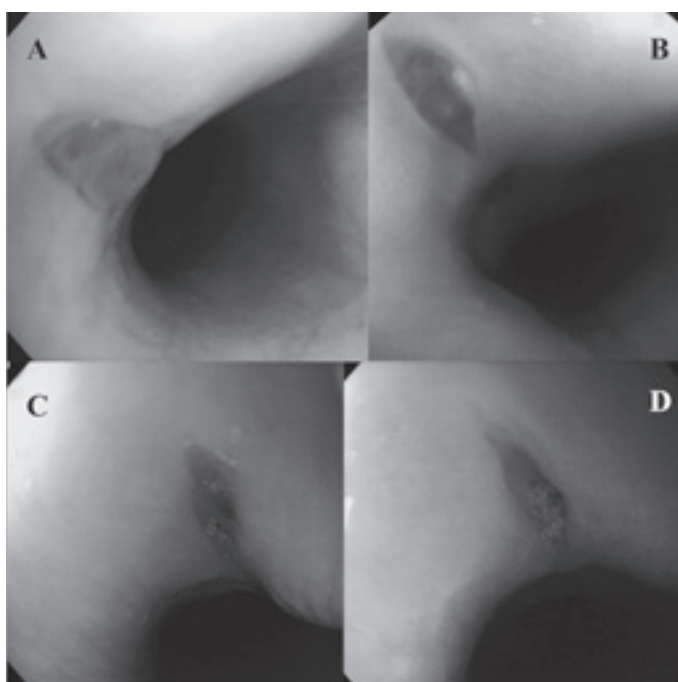


Fig. 3 Gastroendoscopy revealed a submucosal nodule with laceration of esophageal mucosa 30 days after admission (A). The mass and the mucosal laceration gradually diminished 50 days (B), 63 days (C), 70 days (D) after admission.

貧血の進行があり、上部消化管内視鏡検査を行うと、門歯より25 cmの部位に食道壁に壁外性の腫瘤と粘膜の裂孔が認められた (Fig. 3A)。胃内には明らかな病変は認められなかった。胸部CT検査所見とあわせて、左気管傍および気管気管支リンパ節の食道への穿破病巣と考えられ、この部位からの消化管出血と診断した。内視鏡観察時には出血は認められず、粥食で経口摂取を行うとともに抗結核薬の投与を継続した。その後も第50病日、63病日、70病日に施行した内視鏡検査で経過を観察すると、徐々に粘膜の裂孔は縮小し、出血は認められなかった (Fig. 3B, C, D)。第97病日の胸部CT検査で縦隔リンパ節内に認められていた気体は消失し、両肺の粒状影も改善傾向を認めた (Fig. 4A, B, C)。4月中旬からはINH, RFP, EBの3剤の投与に変更し、排菌停止確認後の第102病日に退院した。退院後も消化管出血の再発なく経過し、計9カ月間の抗結核薬治療を行った。

考 察

一般的に縦隔リンパ節結核は一次結核症で見られる所見であり、成人例は比較的稀である²⁾³⁾。また、縦隔リンパ節結核と粟粒結核との合併例も本邦での報告では3例にすぎない^{4)~6)}。HIV症例では、CD4リンパ球数が200/ μ l以下になった場合、粟粒影、縦隔リンパ節腫大を呈することが多いと報告されているが、5%以下とされており稀であると考えられる⁷⁾。

しかし、結核は宿主の免疫状態により種々の病型をと

り、複雑な病態を呈する。本症例ではHIV陰性であったが、粟粒結核に縦隔リンパ節を合併していた。粟粒結核は結核菌に対する宿主の抵抗力が減弱している場合に発症する。粟粒結核発症の要因として、血液疾患、ステロイド剤、免疫抑制剤、糖尿病、膠原病、高齢、低栄養などが挙げられている。本例では不明熱での発症時に既に粟粒結核を発症していたものと考えられ、初診時にはHbA1c値の上昇を認めたものの、これはその後の経過からステロイド剤の影響と考えられたため、本症例における粟粒結核発症の誘因は明らかではない。しかし、腎結核手術の既往、CTでの縦隔リンパ節の石灰化や初期変化群と考えられる左肺上葉の石灰化を伴う小結節の存在から、18歳時に縦隔リンパ節結核と左腎結核で一次結核を発症しいったん治癒していたが、再燃した縦隔リンパ節結核病巣が播種源となり、晩期蔓延型の粟粒結核に進展したものと考えられた。

本症例では治療経過中に大量の消化管出血が認められたが、出血部位の同定と治療に難渋した。消化管出血の急性期には上部消化管内視鏡検査での出血源の同定は困難であったが、その後の内視鏡検査で食道の壁外性の腫瘤と粘膜の裂孔が認められた部位と転院後のCTでリンパ節内に気体の存在が認められた部位とが一致したことから、リンパ節結核の穿破による出血と判断することができた。造影CTにおいて、活動性のリンパ節結核病巣は、内部の乾酪壊死した病巣に一致して中心部に不均一な低濃度域が認められ、炎症性の血管増生のため辺縁部

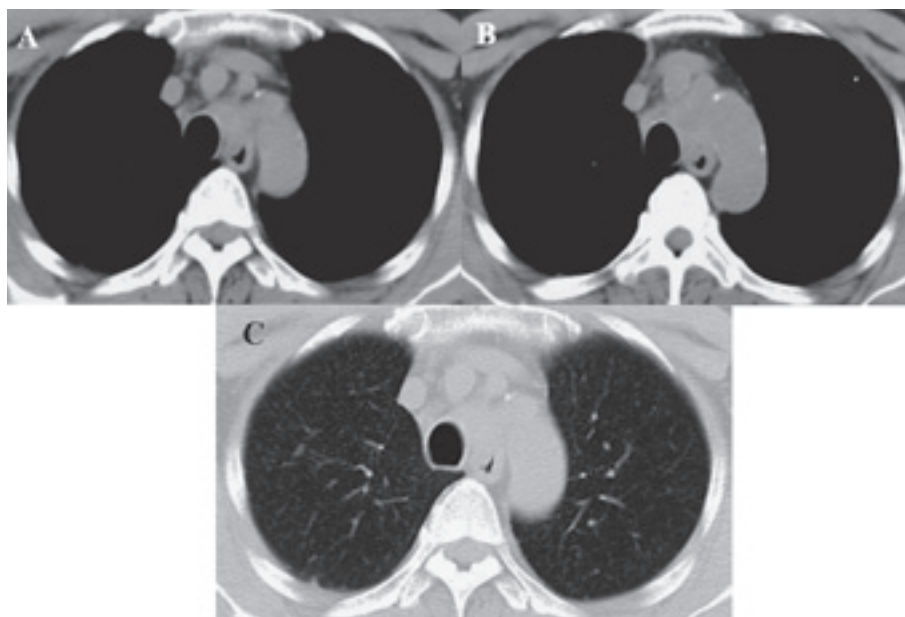


Fig. 4 Chest CT scans showed that the lymph nodes enlargement was relieved and air in these nodes disappeared (A, B). The diffuse granular shadows in the bilateral lung fields were improved (C).

が不規則な厚さに造影され、隔壁構造をとるとされている⁸⁾。さらに、食道周囲のリンパ節内の気体の存在はリンパ節結核病巣の食道への穿破の診断に有用との報告もある^{9)~11)}。今回、転院後のCTでこの所見が認められた時点で、気体を有するリンパ節の近接臓器である食道あるいは気管への穿破を疑い、内視鏡検査を施行すべきであった。

また、気管支鏡検査所見においても、穿破したリンパ節病巣に近接した気管壁に隆起性病変が認められたが、組織学的には炎症性ポリープの所見であり、肉芽腫は同定されなかった。これまでに縦隔リンパ節結核で気道内に炎症性ポリープを認めた症例の報告も存在し、炎症性ポリープの成因として初期悪化、続発性気管支炎や気管支結核の潰瘍性病変の治癒過程における再生機構の関与が考えられている¹²⁾。今回、初診時から少量の気道出血がみられており、喀痰抗酸菌塗抹検査陽性であったことから、この部位にリンパ節結核病巣が穿破し、その潰瘍性病変の治癒過程で炎症性ポリープを形成した可能性も考えられた。

リンパ節結核の食道穿破に対しては外科的治療を必要とせず、抗結核薬投与で閉鎖治癒したとする報告が多い^{10) 11)}。今回、消化管出血の急性期に出血部位の同定が不可能であったことから、絶食・輸血とともに抗結核薬治療を行い、内視鏡下処置や手術療法を行うことなく保存的に治療し、その治癒過程を内視鏡検査で観察することが可能であった。

本症例は上部消化管内視鏡検査および気管支鏡検査で縦隔リンパ節結核病巣の食道への穿破部位と気管内炎症性ポリープを観察しえた稀な症例であり、縦隔リンパ節結核の経過中に消化管出血、気道出血が認められた場合やCTでリンパ節内に気体の存在がみられた場合には、内視鏡検査を行うことが必要であると考えられた。

文 献

- 1) 荒井他嘉司, 稲垣敬三, 森田敬知, 他: 縦隔リンパ節結核12例の臨床的検討. 日呼外会誌. 1992; 6: 112-119.
- 2) 中田昌男, 市場晋吾, 青江 基: 縦隔リンパ節結核症の1例. 日胸. 1990; 49: 218-221.
- 3) 中村守男, 藤島清太郎, 堀 進悟, 他: 縦隔リンパ節腫大による反回神経麻痺と肺野へ進展を呈した頸部・縦隔リンパ節結核の1例. 日呼吸会誌. 2000; 38: 223-228.
- 4) 田畑寿子, 望月吉郎, 中原保治, 他: 縦隔リンパ節腫大, 粟粒影, sIL-2r高値を呈した肺結核の1例. 結核. 2009; 84: 485-489.
- 5) 秋山 潤, 豊田恵美子, 越野 健, 他: 結核性リンパ節炎に粟粒結核を合併した1例. 医療. 1995; 49: 949-953.
- 6) 岩原義人, 元木徳治, 大串文隆: 治療中に陰影の悪化と著明な頸部・縦隔リンパ節腫脹をきたした粟粒結核の1例. 結核. 2006; 81: 531-535.
- 7) Sharma SK, Mohan A, Sharma A, et al.: Miliary tuberculosis: new insights into an old disease. Lancet Infect Dis. 2005; 5: 415-430.
- 8) Mendelson DS, Cohen BA, Krellenstein DJ, et al.: Computed tomography findings in tuberculous mediastinitis. J Comput Tomogr. 1987; 11: 123-127.
- 9) 石川成範, 矢野修一, 若林規良, 他: 結核性縦隔リンパ節炎により食道穿孔をきたした粟粒結核の1例. 結核. 2009; 84: 159-164.
- 10) Ohtake M, Saito H, Okuno M, et al.: Esophagomediastinal fistula as a complication of tuberculous mediastinal lymphadenitis. Intern Med. 1996; 35: 984-986.
- 11) Im JG, Kim JH, Han MC, et al.: Computed tomography of esophagomediastinal fistula in tuberculous mediastinal lymphadenitis. J Comput Assist Tomogr. 1990; 14: 89-92.
- 12) 富永正樹, 岩崎由紀子, 加藤 収: 炎症性気管支ポリープ様所見を認めた結核性縦隔リンパ節炎の1例. 気管支学. 2005; 27: 325-329.

1) 荒井他嘉司, 稲垣敬三, 森田敬知, 他: 縦隔リンパ節

Case Report

A CASE OF MILIARY TUBERCULOSIS WITH ESOPHAGEAL PERFORATION
AND A TRACHEAL INFLAMMATORY POLYP
SECONDARY TO MEDIASTINAL LYMPHADENITIS CAUSING
MASSIVE HEMATEMESIS AND HEMOSPUTUM

¹Masatsugu OHUCHI, ¹Shuhei INOUE, ¹Yoshitomo OZAKI, ¹Takuya FUJITA,
and ²Jun HANAOKA

Abstract A 62-year-old man with a history of left nephrectomy due to tuberculosis was referred to our hospital, because chest radiography showed diffuse miliary shadows in the bilateral lung fields, and acid-fast bacilli were detected from his hemoptysis after steroid therapy for fever of unknown origin. Chest computed tomography showed mediastinal lymph node enlargement with partial calcification of these lymph nodes together with the presence of air. He was diagnosed with miliary tuberculosis and tuberculous mediastinal lymphadenitis and anti-tuberculosis drug therapy was started. Massive hematemesis occurred 11 days after the start of the treatment. Although gastroendoscopy was performed, the bleeding point could not be identified. The patient's symptoms improved after conservative therapy. Repeat gastroendoscopy showed a sub-mucosal nodule with laceration of the esophageal mucosa, 30 days after admission for the examination of melena and progression of anemia. The episodes occurred because of esophageal perforation secondary to tuberculous mediastinal lymphadenitis. Bronchoscopic examination for hemoptysis showed an inflammatory polypoid lesion in the left tracheal wall. These symptoms improved with anti-tuberculosis drug therapy. In our case, mediastinal lymphadenitis progressed to

miliary tuberculosis because of endogenous reactivation. We report a rare case of esophageal perforation with a tracheal inflammatory polyp secondary to tuberculous mediastinal lymphadenitis. In cases of tuberculous mediastinal lymphadenitis, if hematemesis or hemoptysis is observed, an endoscopic examination should be performed.

Key words: Tuberculous mediastinal lymphadenitis, Miliary tuberculosis, Perforation of tuberculous mediastinal lymphadenitis, Tracheal inflammatory polyp, esophageal bleeding, hemoptysis

¹Department of Thoracic Surgery, National Hospital Organization Shiga National Hospital, ²Department of Thoracic Surgery, National University Corporation, Shiga University of Medical Science

Correspondence to: Masatsugu Ohuchi, Department of Thoracic Surgery, National Hospital Organization Shiga National Hospital, 255 Gochi-cho, Higashiomi-shi, Shiga 527-8505 Japan. (E-mail: ohuchi-masatsugu@shiga-hosp.jp)