

非定型的脳嚢虫症

竹下, 岩男
九州大学医学部脳神経病研究施設外科部門

李, 厚澤
中国医科大学神経外科

今本, 尚之
九州大学医学部脳神経病研究施設外科部門

曹, 云鵬
中国医科大学神経内科

他

<https://doi.org/10.15017/7324202>

出版情報：福岡醫學雑誌. 85 (1), pp.29-34, 1994-01-25. 福岡医学会
バージョン：
権利関係：



症 例

非定型的脳囊虫症

九州大学医学部脳神経病研究施設外科部門¹⁾

中国医科大学神経外科²⁾, 中国医科大学神経内科³⁾

盤錦市二院神経外科⁴⁾, 本溪市中心医院神経外科⁵⁾

竹下 岩男¹⁾・李 厚澤²⁾・今本 尚之¹⁾

曹 云鵬³⁾・勾 春富⁴⁾・劉 徳全⁵⁾

朴 浩哲²⁾・福井 仁士¹⁾

Unusual Manifestation of Cerebral Cysticercosis

Iwao TAKESHITA¹⁾, Hou-Ze Li²⁾, Naoyuki IMAMOTO¹⁾

Yun-Peng CAO³⁾, Chun-Fu GOU⁴⁾, De-Quan LIU⁵⁾

Hao-Zhe PIAO²⁾ and Masashi FUKUI¹⁾

Department of Neurosurgery, Kyushu University Hospital, Fukuoka, Japan¹⁾,

Departments of Neurosurgery²⁾ and Neurology³⁾, National China Medical University, Sheng Yang,

Department of Neurosurgery, Pan Jin Second City Hospital⁴⁾,

Pan Jin, and Ben Xi Central City Hospital⁵⁾, Ben Xi China

We have surgically treated two patients with cerebral cysticercosis, which were pre-operatively unexpected due to unusual CT and MRI manifestations. A 24 year old chinese farmer with intermittent severe headache for 6 years was examined by CT and MRI. A huge cystic lesion with same density or intensities to CSF occupied retroclival posterior fossa to upper cervical spinal canal and displaced neural structures backwardly. By suboccipital craniectomy, watery clear cyst fluid of 44ml was aspirated and the shrunken cyst was pulled out with ease. It was unable to predict until an electron microscopic study, which revealed a larva with three layers of microvilli, vesicular tegmentum and infrategmental muscle bundles and vesicles. The findings were same to those of racemose cysticercus of human brain. Giant cysts of cysticercosis were infrequently present supratentorially, although infratentorial or basal cysticercosis were racemose and small. The present case may be the first case of a huge cyst of cysticercosis in posterior fossa.

A 44 year old Japanese businessman with 15 years history of general convulsion underwent craniotomy due to a small, but growing cystic granulomatous mass in right inferior frontal gyrus. The CT scan examined at 3 years after his first general convulsion revealed a small round low density mass, 5mm in diameter, in right frontal lobe and its wall was weakly enhanced by contrast media. The follow-up CT scans and MRIs revealed that the enhancing cystic mass became thick and deformed, and perifocal edema came to evident and progressed stepwise by attacks of general convulsions. The removed mass was dumbbell shaped, 1.8x1x1cm in size, and made by 2 chambers. The smaller chamber contained brickbrown fluid, while a gelatinous shiny mass was included in the larger chamber. By histopathological examination, the gelatinous mass was diagnosed as a cysticercus, which was encapsulated with thick collagenous tissue with numerous lymphocytes. It is suggested that the larva of cysticercus contains some long-lasting toxic agents

which chronically proceed granulomatous reactions. We have to mind that any endemic disease may occur even in non-endemic countries.

はじめに

囊虫症 (cysticercosis) は、経口摂取された条虫の虫卵が小腸内で孵化して幼虫 (囊虫: cysticercus) となり、血中によって、身体各所、とりわけ皮下、筋肉、心臓、眼、脳、に移行し、同部位に障害を引き起こすのをいう。有鉤条虫 (*Taenia solium*, pork tapeworm) の囊虫は好んで頭蓋内に移行、寄生する⁹⁾。脳囊虫症は、急性髄膜炎、水頭症、占拠性病変、てんかん発作など多彩な症状を呈し、CT 所見も様々ではあるが一応確立されている¹⁾³⁾⁶⁾⁷⁾¹⁰⁾¹⁴⁾。

囊虫症の診断の手がかりは、患者の病歴、生活歴、あるいは旅行歴が、有鉤条虫の汚染地区に関連しているかどうかが重要である。しかし、人の交流、新鮮あるいは冷凍食品の流通は広域化しており、非汚染地域にあっても風土病—地域病的伝染病に感染する機会がないわけではない。囊虫症非汚染地区に居住し、長期間にわたり異なった診断 (疑い) のもとに経過観察されていた九州大学の一症例が、最近手術がおこなわれ、摘出標本の病理組織学的検索により、囊虫症であることが判明した。

この度、著者の一人 (竹下岩男) は、国際協力事業団よりふたたび、中国、瀋陽市にある中国医科大学および中日医学教育センターに派遣される機会にめぐまれた。その間に、保存されている囊虫症例の CT フィルムを見せてもらったが、そのほとんどが多発性の病変であった。中国医科大学においても、開頭術の対象となる腫瘍性病変を呈する感染症は少ない¹²⁾。しかし、中国医科大学およびその関連病院がカバーする地域では、囊虫症が激減しているとはいっても今でも発生している。従って、中国医科大学においては、囊虫症は“忘れられた”疾患ではない。最近、後頭蓋窩を占拠する巨大囊胞が、術前診断とは異なり、電子顕微鏡の検索により囊虫症であることが判明した一例を経験した。これら二症例を報告するとともに、術前には診断し得なかった理由について検討した。

症例報告

症例 1: 24 歳、中国人男性、農民。

6 年前から、誘因なく後頭部に鈍痛を感じるようになり、また 1 週間位続く強い頭痛が月に 1~2 回おこっ

ていた。『神経性頭痛』として、投薬治療を受けていたが軽快しないため CT、MRI の検査が行われた (Fig. 1)。

斜台部から上部頸椎にかけて髄液と等信号の囊包性病変があり、脳幹—上部頸髄を後方に強く圧排していた。その他の病変としては、水頭症が見られるのみであり、脳実質内に囊胞や石灰化巣はなかった。囊胞は、髄液と等信号を呈しており、病歴、現症、検査成績ともに髄膜炎を示唆するのはなかった。くも膜囊胞の術前診断のもとに後頭下開頭術を行った。左小脳半球を軽く上方に圧排して、延髄前方部の囊胞壁を露出した。囊胞壁はうすく、水様透明な内容物を 4 回に分けて、計 44ml 穿刺吸引した。吸引していくにしたがって、囊胞はどんどん縮小していき、乳白色調となった。縮小した囊胞壁は、周囲組織との癒着もなく容易に引き出すことができ、一塊として摘出できた。H.E 染色による組織検査では診断できず、電子顕微鏡検査を行った。電子顕微鏡検査での標本は、規則的に配列した表面絨毛 (基底部が太く先端部は細い)、多数の裂隙を有する被蓋層、被蓋層下の筋線維束と不規則空胞状細胞小器管層の 3 層から構成されていた (Fig. 2)。患者は有鉤条虫汚染地区に居住していることから有鉤条虫の幼虫である可能性が高く、囊虫症と診断した。

症例 2: 44 歳、日本人男性、会社事務員。

29 歳時に、全身強直間代性けいれん発作で発症し、3 年後にけいれん重積状態になり精密検査が行われた。

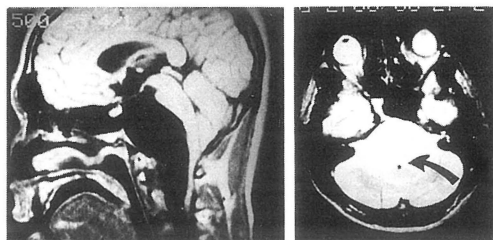


Fig. 1 Case 1 MRI T1 (left) and T2 (right) images. A huge mass with equal intensities to CSF occupied posterior fossa to upper cervical spinal canal and backwardly displaced vertebral-basilar artery (arrow), infratentorial neural structures and upper spinal cord.

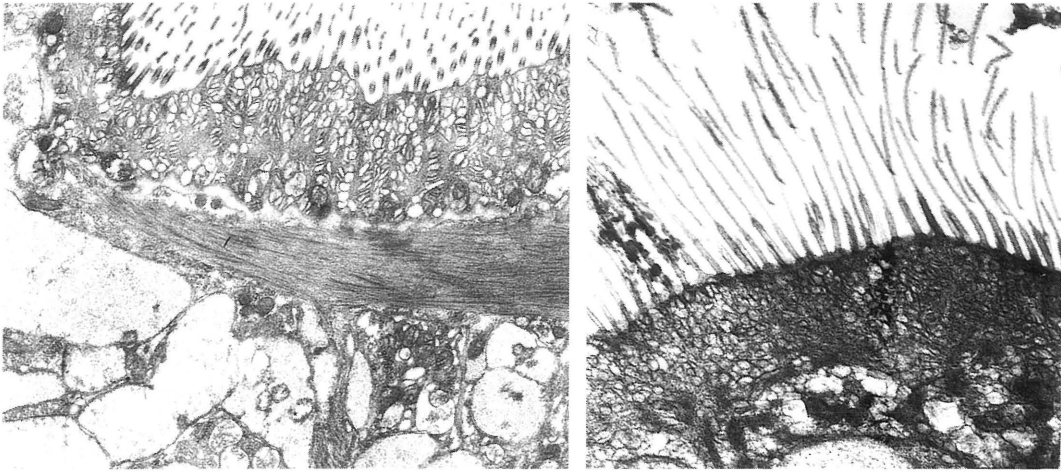


Fig. 2 Case 1 electron microscopic finding. The larva was geometrically arranged by three layers of surface microvilli, tegument vesicular layer, and infrategumental muscle bundles and vesicles (left). The microvilli were rather regularly arranged and thick basilar segments to slender peripheral tips (right).

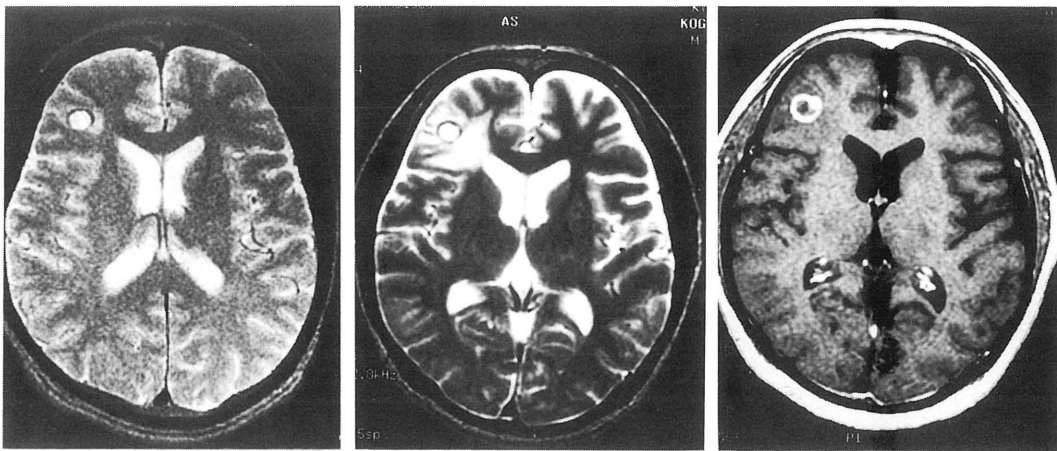


Fig. 3 Case 2 MRI. The left (T2 image) was taken in 1988, while the middle (T2 image) and right (Gd-DTPA enhanced T1 image) were taken in 1993. The perifocal edema manifested with hyperintensity of T2 image became extensive in the last 5 years. The cyst wall was enhanced by Gd-DTPA

CT スキャンでは、右前頭葉皮質下に、直径 5 mm のほぼ円形の低吸収陰影があり、その辺縁は造影剤でわずかに増強された。脳血管撮影では、病巣近傍の脳表静脈が拡張しているように思われた。以来、『血管腫疑い』として、抗けいれん剤の投与を行いながら、外来で経過観察された。初発時は東京に住んでいたが、転勤で長崎市にいき、1988 年 (39 歳) からは福岡市に住むようになり、九州大学病院で、投薬、経過観察された。

当院受診時の、MRI, intermediate image では、低信号の嚢胞内に屈曲蛇行した等信号バンドがみられ、T2 image では、嚢胞内は一様に高信号で、嚢胞の内側白質は三日月状の高信号を呈した (Fig. 3, left). 1 年に 1 回程度のけいれん発作があり、follow-up CT では、嚢胞はやや増大し、病巣周囲の低吸収域も拡大してきた。手術をすすめたが、拒否していた患者が手術を受けるきっかけとなったのはふる場で、意識消失し

た状態で発見されたためである。手術前 MRI でも浮腫の拡大はあきらかであり、Gd-DTPA で増強される嚢胞壁は厚く、やや不規則となり、当初の所見と異なってきた (Fig. 3, middle and left)。嚢胞部に流入出する血管を示唆する所見は得られなかった。右前頭開頭を行い、下前頭回皮質一白質に、表面平滑な雪だるま状 (snowman like) あるいは亜鈴状 (dumbbell shape) の大きさ $1.8 \times 1 \times 1$ cm の腫瘤を一塊として摘出した。長軸方向での断面では、2 個の嚢胞腔からなり、小さな方は黄褐色泥状の液体を含み、大きい方は

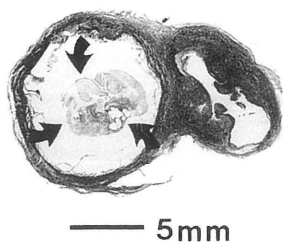


Fig. 4 Case 2 dumbbell-shaped cystic mass. An gelatinous mass (arrows) was included in the larger chamber (Masson-trichrome staining).

は 5 mm 大ほどの、光沢のある半透明白色調のゼリー状物質が含まれていた (Fig. 4)。組織学的には、嚢胞内に含まれていたゼリー状物質は、不規則に入りこんだ乳頭状構造物を無構造物が取り囲まれていた (Fig. 5, left)。その後、精力的な標本作製組織染色により嚢虫であることが判明した。嚢胞壁はコラーゲン線維性結合組織からなり、著しい小円形細胞 (リンパ球) の浸潤をみとめた (Fig. 5, right)。

患者は日本国内で、嚢虫症の発生が報告された地方に旅行したことはなく、海外渡航もしていない。これまでに脳脊髄膜炎の既往を疑わせる症状もなかった。

考 察

中枢神経に嚢虫が侵入寄生する部位は、頭蓋内くも膜下腔 (特に頭蓋底部) が 40~50% で最も多く、脳実質内のみは 13~23%、脳室内は 0.7~17% と施設による頻度は異なるが、脊椎管内は 1% 以下と共通している²⁾¹⁰⁾。脳室内では第 4 脳室が圧倒的に多く、虫体による閉塞性水頭症をきたし、また一側 Monro 孔を閉塞したりする⁹⁾。一方、剖検脳による虫体検索では、くも膜下腔—脳室系を含む液腔内が 35%、軟膜下一大脳皮質内が 43%、白質内が 10% で、中心灰白質には 5% である⁹⁾。

脳実質内嚢虫症の未治療 113 例の経時的 CT 像の検討によると、急性期には 1) 小さな限局性低吸収浮腫状病変で造影剤による増強効果が認められないか、2) 一

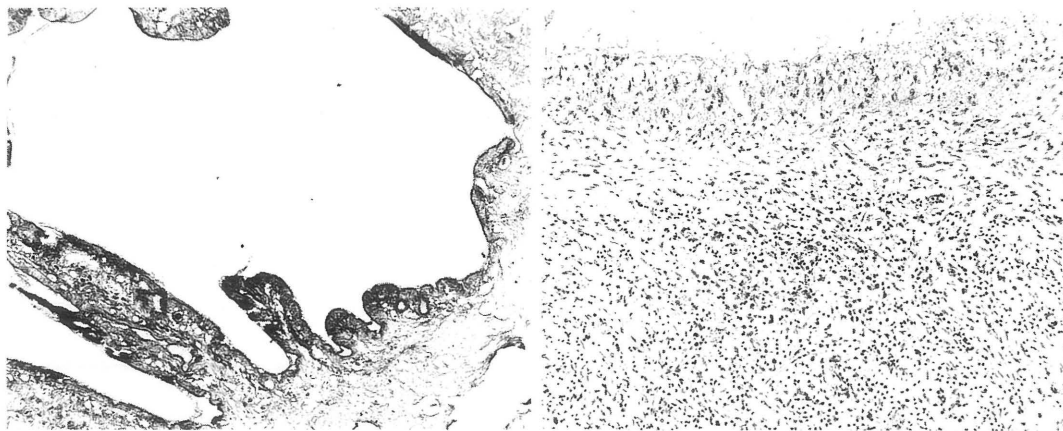


Fig. 5 Case 2 light microscopic finding of "gelatinous" mass (left: 82 $\times$; Masson trichrome staining) and cyst wall (right: 100 $\times$; H. E. staining). The "gelatinous" mass was irregularly folded papillomatous structure in amorphous, but vacuolar substance. The cyst wall of lesser chamber was thick collagenous fibers, epithelioid cells and infiltrated with numerous lymphocytes.

様に増強される小さな低吸収囊胞状病変としてみとめられ、慢性期になると3) 増強効果のない囊胞、4) リング状に増強される囊胞、あるいは5) 石灰化巣となり、これらの病変が混在する例も多い³⁾。囊胞周囲に浮腫をとともなうこともあり、ともなわないこともある。囊虫症急性期には、ずい液検査で補体結合反応が約80%に陽性であるが、慢性期には20%の陽性率を示すにすぎない¹⁰⁾。多発性病巣を示すのは著者らの症例では、90%以上であるが、50%前後にすぎないとの報告もある¹¹⁾。多発性の小囊胞や石灰化巣があれば、慢性期であっても囊虫症が疑われるが、単発生の場合には診断は容易ではない。

脳実質内に大きな単房性囊胞を形成する寄生虫症としては *ecchinococcosis* が有名であり、通常は単発性である⁴⁾⁸⁾。囊虫症における囊胞は、頭蓋外では一様に小さくせいぜい1 cm 大であるが、頭蓋内においては時として4 cm 以上の巨大囊胞が形成されることがある。著者らの一人(曹 云鵬)が Praziquantel 治療による CT 所見の経時的変化を検討するために検査を行った47 症例のうち4 cm 以上の巨大囊胞は2 例(側脳室三角部、シルビウス溝部)であった。いずれも、単発性ではなく、小囊胞あるいは増強される小病変をともなっていた。文献上、局在のあきらかな巨大囊胞をふくめると、側脳室三角一下角部が3 例、シルビウス溝部が2 例、前頭葉部1 例で、テント下の報告はない²⁾⁶⁾⁷⁾¹⁴⁾。

前述のように、後頭蓋窩を含む脳底部くも膜下腔に囊虫は寄生しやすいが、その囊胞はぶどう状多房性(racemose)であることが多い。頭蓋底あるいはテント下の単房性囊胞は、中頭蓋底と小脳半球部にみられるが、いずれも3 cm 以下のものである¹¹⁾。症例1は、有鉤条虫汚染地域在住者であり、かつ病変部位が囊虫症の好発部位であるにもかかわらず、術前に診断し得なかったおもな理由は、1) 単発性である2) 後頭蓋窩にあって、単房性でかつ巨大である3) 髄膜炎の既往あるいは所見がない点であった。

症例2は、けいれん発作初発から3年後に最初のCT 検査が行われており、その所見は慢性期の囊虫症囊胞と矛盾しない。しかし、単発性であること、囊虫症の発生しない地域であることより、頻度的には囊虫症より血管腫の方が疑われた。発症から10年後に著者らの病院で行ったMRI 検査では、囊胞内に索状陰影が認められた。その後の経時的検査で、造影剤で増強される囊胞壁は変形肥厚し、浮腫の範囲も拡大していったことより、血管腫というよりは、慢性活動性炎症

性肉芽腫の病像を呈した。浮腫の拡大は、虫体が死滅することによって、虫体からの催炎性物質が周囲にしみだし、慢性の炎症反応をひきおこしたためと思われる。組織診断後にCT, MRI を検討しなおしてみると、まさに囊虫症であるが、非流行地区においての単発性肉芽腫を診断することは困難である。CT, MRI の画像所見からは、慢性期囊虫症の囊胞は、くも膜囊胞とは鑑別できないのも多い。血管腫、肉芽腫、囊胞などが手術による神経障害が生じにくい部位にあって、てんかん発作の焦点となっている場合、薬物による治療が比較的うまくいっていても、手術摘出によるてんかんの治療とともに病理組織学的に確定診断を行ったほうがよいとおもわれる。

総 括

後頭蓋窩に、CT, MRI 上くも膜囊胞と区別のつかない巨大囊胞を形成し、電子顕微鏡で診断し得た囊虫症と、てんかん発作の原因となっていた単発性の慢性進行性肉芽腫で、病理組織学的に囊虫症と診断し得た症例を報告した。

中日医学教育センター主席顧問渡辺陽之輔先生、曳地和博先生、中国医科大学神経外科主任教授楊 国瑞先生および神経外科教室の諸先生方のご協力に感謝致します。症例2の病理組織診断は、九州大学医学部脳神経病研究施設神経病理学部門、岩城 徹先生と同学部寄生虫学教室、藤野隆博先生のご尽力によってなされた。また、写真作製は、九州大学医学部、栗山芳明氏、国崎 勲氏によってなされた。ここに、心から感謝いたします。

参 考 文 献

- 1) Byrd SE, Locke GE, Biggers S and Percy AK: The computed tomographic appearance of cerebral cysticercosis in adults and children. *Radiology* 144: 819-823, 1982.
- 2) Carbajal JR, Palacios E, Azar-Kia B and Churchill R: Radiology of cysticercosis of the central nervous system including computed tomography. *Radiology* 125: 127-131, 1977.
- 3) Kramer LD, Locke GE, Byrd SE and Dar-yabagi J: Cerebral cysticercosis: Documentation of natural history with CT. *Radiology* 171: 459-462, 1989.
- 4) 李 厚澤, 謝 芳文, 孫 守城: 脳肺吸虫症新鮮例のCT 所見. *脳神経外科* 20: 91-97, 1992.
- 5) 李 成祥, 崔 充昌, 張 文卒, 劉 瑞德: 脳室内猪囊虫症. *中国神経精神疾病雑誌* 13: 43-44, 1987.
- 6) Lobato RD, Lamas E, Portillo JM, Roger R,

Esparza J, Rivas JJ and Munoz MJ: Hydrocephalus in cerebral cysticercosis. Pathogenic and therapeutic considerations. *J. Neurosurg.* 55: 786-793, 1981.

7) Minguetti G and Ferreira MVC: Computed tomography in neurocysticercosis. *J. Neurol. Neurosurg. Psychiat.* 46: 936-942, 1983.

8) Rudwan MA and Khaffaji S: CT of cerebral hydatid disease. *Neuroradiology* 30: 496-499, 1988.

9) Santin G and Vargas SJ: Roentgen study of cysticercosis of central nervous system. *Radiology* 86: 520-528, 1966.

10) Sotelo J, Guerrero V and Rubio F: Neurocysticercosis: A new classification based on

active and inactive forms. A study of 753 cases. *Arch. Intern. Med.* 145: 442-445, 1985.

11) Stern WE: Neurosurgical considerations of cysticercosis of the central nervous system. *J. Neurosurg.* 55: 382-389, 1981.

12) 竹下岩男, 楊 国瑞, 朴 浩哲, 孫 守城, 福井仁士: 中国と日本における原発性脳腫瘍の比較 — 中国医科大学と九州大学の症例を中として. *福岡医学雑誌* 83: 386-391, 1992.

13) Vogt M and Brown WJ: Fine structure of a racemose systicercus from human brain. *J. Parasitol.* 65: 262-266, 1979.

14) Yang S-Y, Wang M-L and Xue Q-C: Cerebral cysticercosis. *Surg. Neurol.* 34: 286-293, 1990.

(受付 1993-12-9)