

症 例

肺非結核性抗酸菌症に対する手術治療後の遅発性感染性胸壁嚢胞の1例

徳島赤十字病院外科¹⁾, 同 病理診断科²⁾

山本清成¹⁾ 石倉久嗣¹⁾ 溝 潤 海¹⁾

松本大資¹⁾ 笠井孝彦²⁾

症例は68歳, 男性. 57歳時に肺非結核性抗酸菌症に対して半年間の抗菌化学療法を行った. その後, 咯血をきたし58歳時に胸腔鏡下右上葉切除を施行した. 術後抗菌化学療法を希望せず, 経過観察の方針となった. 約1年後に右肩甲骨下のポート創直下に被膜を有する嚢胞が出現し, 局所麻酔下にて切除した. 病理学的に嚢胞壁には特異的变化はなく, 肥厚した線維性胸膜と診断された. 内容液のZiehl-Neelsen染色および抗酸菌培養は陰性であり, 臨床経過から胸壁ヘルニアと診断した. 嚢胞切除から8年後, 同部位の再膨隆を認めた. 病巣範囲は以前より広範囲であった. 全身麻酔下にて硬い線維性被膜を有する嚢胞を完全に切除した. 胸腔鏡での観察では胸膜および胸腔内に異常を認めなかった. 嚢胞壁の抗酸菌培養およびPCR検査で*Mycobacterium avium*が検出され, 感染性胸壁嚢胞と診断した. 遅発育菌による胸腔鏡手術後の胸壁感染は稀であるが, 念頭に置くべきで, 術前後の抗菌化学療法の重症性が再認識された.

索引用語: 肺非結核菌抗酸菌症, 胸壁嚢胞, 手術部位感染

緒 言

非結核性抗酸菌は脂質に富む疎水性の細胞外膜を有し, 組織表面に接着してバイオフィルムを形成する. その結果, 種々の環境下において生存し長期間の常在が可能であることが知られている¹⁾.

今回われわれは, 肺*Mycobacterium avium*症(肺*M. avium*症)に対する手術から9年6カ月後に発症した感染性胸壁嚢胞の1例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する.

症 例

患者: 68歳, 男性.

併存疾患: 肺*M. avium*症.

家族歴: 特記事項なし.

現病歴: 57歳時に肺*M. avium*症に対してrifampicin, ethambutol, clarithromycinでの抗菌化学療法が行われたが, 肝障害および顔面に紅斑と鱗屑を伴う湿疹が出現したため半年間で中止となった. その後, 58歳時に咯血をきたし当院へ紹介となり, 右上葉の線維空洞

型の病変に対して, 3portでの胸腔鏡下右上葉切除を施行. 病巣を完全に切除した (Fig. 1). 副作用の経験を理由に術後抗菌化学療法を希望しなかった. 手術から1年6カ月後に右肩甲骨下のポート創直下に被膜を有する嚢胞が出現し, 局所麻酔下にてこれを切除した (Fig. 2). 病理学的に, 嚢胞壁に特異的变化は指摘されず肥厚した線維性胸膜と診断された. 内容液は黄色透明であり, Ziehl-Neelsen染色および抗酸菌培養は陰性であった. 従って, 臨床経過から胸壁ヘルニアと



Fig. 1 単純CT所見: 初診時, 右肺上葉切除前. 右S3に空洞を伴う結節あり.

2024年4月30日受付 2024年7月9日採用

(所属施設住所)

〒773-0001 小松島市小松島町井利ノ口103



Fig. 2 単純CT所見：右肺上葉切除から1年6カ月後、右胸壁内に境界不明瞭な低吸収領域あり（矢頭）。

診断し終診とした。

囊胞切除から8年経過した2022年9月、右肩甲骨部の再膨隆に気づき当院を再受診した。

血液検査：WBC 6,880/ μ L, CRP 0.29mg/dL, 血中MAC抗体濃度 >10.00 U/mLとMAC抗体濃度の異常値を認めた。その他、腫瘍マーカーを含めて異常値を認めなかった。

胸部造影CT：右僧帽筋や菱形筋内の頭尾側方向に広い範囲において、皮膜を有する囊胞を認めた。囊胞被膜のみ造影効果を認めた（Fig. 3）。

以上の所見から感染性胸壁囊胞を疑い、囊胞切除を行った。

手術所見：まず、第7肋間中腋窩線にcamera portを挿入し胸腔内を観察したが炎症所見はみられず、壁側胸膜および胸腔内臓器に病変は及んでいないものと判断した（Fig. 4a）。囊胞の直上にあたる肩甲骨下角やや尾側の皮膚を切開し、既知の囊胞壁に達した。囊胞は右僧帽筋・広背筋の下および肩甲骨裏面に潜り込むように進展していた（Fig. 4b）。囊胞壁は非常に硬く、内腔には白色の沈殿物を有する黄色の混濁した液体が貯留していた（Fig. 4c）。広範囲に及ぶ囊胞を完全に切除し、十分な洗浄を行ったのち、囊胞切除腔内にドレーンを留置して手術を終了した（Fig. 5a）。手術時間は2時間57分、出血量は微量であった。

摘出標本：囊胞壁の一部に、多核巨細胞を含む類上皮肉芽腫の形成が見られた。Ziehl-Neelsen染色では抗酸菌は確認されなかったが、抗酸菌感染症に伴う炎症性変化と診断した（Fig. 5b）。囊胞壁の組織培養およびPCR検査で*Mycobacterium avium* (*M. avium*) が検出され、遅発性感染性胸壁囊胞と診断した。

術後、囊胞切除腔内のドレーンを細径のペンローズ

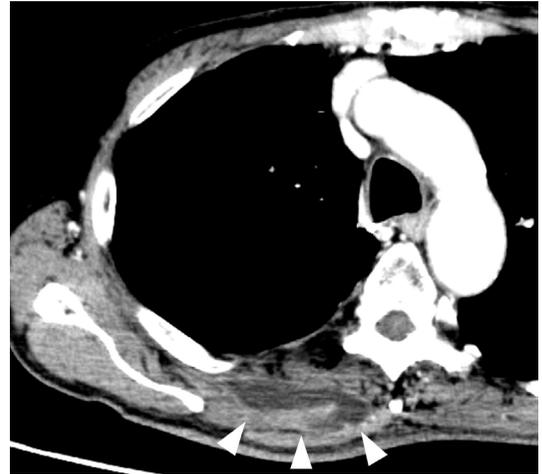


Fig. 3 造影CT所見：初回胸壁囊胞切除から9年後、右僧帽筋や菱形筋内に囊胞病変があり（矢頭）、囊胞皮膜は造影効果を認めた。

ドレーンへ入れ替えて退院し、外来にて3カ月に渡り経過観察を行った。しばらく漿液性排液によるガーゼ汚染が持続したが、徐々に排液が減少し消失したので、ドレーンを抜去した。抗菌化学療法の希望はなく経過観察の方針となり、術後15カ月時点で病態の再燃を認めていない（Fig. 6）。

考 察

非結核性抗酸菌症（NTM；*nontuberculous mycobacterial*）は水や土壌などの環境中に常在する。中でも、呼吸器に病変を引き起こす代表的なNTMである*Mycobacterium avium* complex（MAC）は、日常生活に密接な環境から高頻度に分離され、近年、中高年女性を中心に感染者が急増している。実際、本邦の肺NTMの推定罹患率は24.9人/10万人と算出され、2007年の全国調査時と比較し約4.6倍に増加しているのが現状である²⁾。無治療のNTM患者の予後が不良であるとの報告³⁾がある中で、2020年に改正された国際的ガイドライン⁴⁾において、喀痰塗抹鏡検の陽性例、胸部画像で空洞を認める症例には治療を推奨することが明記され、その治療適応範囲が拡大したと言える。治療の主軸は抗菌化学療法であり、内科治療により治癒が期待できない病状においては手術治療が選択されるが、あくまで補助的な治療であるため、術後も同様のレジメンを継続する必要があるとされる^{4)~6)}。

NTMの胸壁感染について、Shishidoら⁷⁾は免疫不全のない、NTM感染による孤立性胸壁腫瘤の症例を

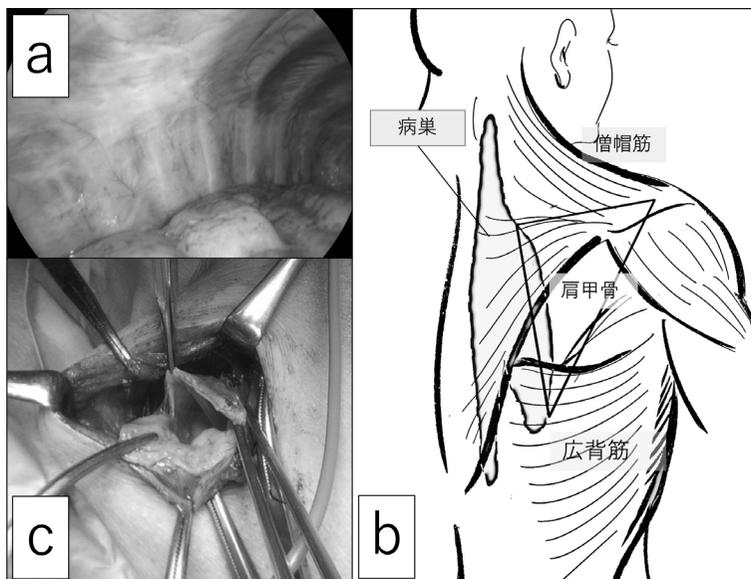


Fig. 4 手術所見：a：胸腔鏡所見：胸壁病変直下の壁側胸膜には炎症は及んでいなかった。b：病巣位置。c：胸壁嚢胞の肉眼所見：硬い嚢胞壁を切開すると黄色混濁した液体を認めた。

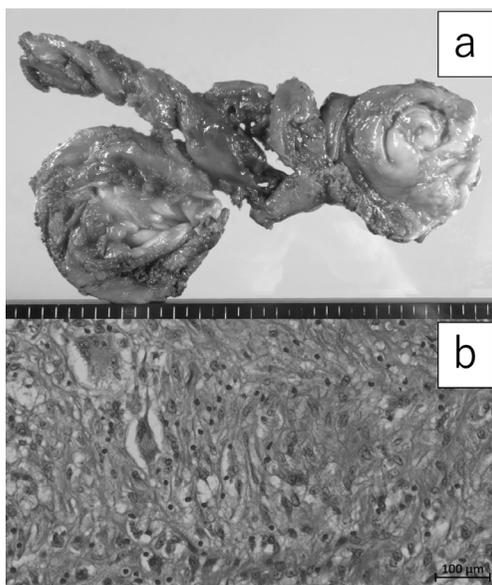


Fig. 5 病理検査所見：a：切除標本肉眼所見：皮下嚢胞病変の内腔面は粗造であり，帯状の炎症性滲出物と炎症線維化巣からなった。b：病理組織所見（H.E.染色，×40）：多核巨細胞を含む類上皮肉芽腫の形成がみられた。



Fig. 6 術後139日目の創所見：創部感染所見はなく，皮下の液体貯留も消失した。

報告している。起因菌は *M. avium* であり、病巣の完全切除により良好な経過をたどっている。本症例でも同菌による病態であるが、発症機序は異なり、初回肺切除時の手術創に残存した菌が長い年月をかけて緩徐に増殖したもの、つまり手術部位感染 (SSI ; surgical site infection) と考えられた。

インドでは術後NTM感染症の報告が多く、Mhaskら⁸⁾は術後治癒遅延の患者25例中6例にNTMが関与していたと報告している。Shahら⁹⁾は術後創部感染症を発症した230例の内7例がNTM感染症であったと報告しており、術後10~21日後に浮腫を伴う紅斑を認め、化膿後に組織の崩壊が起こり、分泌物を伴う場合もある。全身症状を伴わないが、これらの局所所見に対して抗菌薬治療は奏効しないといった臨床的な所見の共通点を指摘している。Bhallaら¹⁰⁾7,615件の手術症例の内、303例がSSIと診断され、その内NTMによる術後創部感染症は33例であったと報告し、創傷治癒遅延や漿液性分泌物が診断の契機であるが、いずれも臨床症状に乏しく、診断に至るまでの期間が長いことを問題視している。Mhaskら⁸⁾の *Mycobacterium kansasii* による創部感染症2例を除き、いずれの報告でも、Runyon分類IV群である *Mycobacterium fortuitum* や *Mycobacterium chelonae* の迅速発育菌が起炎菌として同定された。

本症例においては *M. avium* が遅発性に増殖したものと考えられた。われわれが検索した限り、肺非結核性抗酸菌症の術後創部に同菌による遅延性感染をきたした報告はなく、稀な病態であると考え、診断に際しては肺非結核性抗酸菌症の手術治療から数年後においても同菌による感染症をきたす可能性があることを念頭に置く必要がある。肺切除から1年6カ月後の嚢胞切開手術で抗酸菌が同定されなかったのは、摘出組織の問題か、培養前処理の問題かは不明であるが、いずれにせよ菌体量が少なかったことが原因と考えられた。その8年後の手術においては、前回手術時と比較して嚢胞壁および貯留液の性状が明らかに異なっており、*M. avium* の緩徐な増殖速度が伺えた。初回到胸壁嚢胞が出現した時点では *M. avium* 感染症を積極的に疑っていなかったため、血中MAC抗体濃度は測定しなかった。もし、血中MAC抗体濃度の異常値を確認し、かつ嚢胞手術後にその数値が低下したならば、たとえ切除組織から抗酸菌が同定されずとも、臨床的に感染性嚢胞と診断し抗菌化学療法を行うことで、同部位の感染の再発を防ぎ得た可能性がある。仮に抗菌

化学療法を希望されずとも定期的な画像検査を計画できたのかもしれない。

ガイドラインでは術後1~2年の術後抗菌化学療法が推奨されている。周術期化学療法を行わなかった肺NTM手術例において、観察期間中に無再発であった症例も報告されている¹¹⁾が、長期予後については不明である。小橋ら¹²⁾は、標準的抗菌化学療法で排菌陰性化するか臨床的に改善した非手術肺MAC症例において、1~2年で治療を中断した群と比べ、より長期に治療した群の方が予後がよいと報告しており、抗菌化学療法が再発リスクを軽減することに異論はない。従って、本症例において肺切除後に抗菌化学療法が行えていれば再発を防ぎ得た可能性があるのではないかと推測された。

結 語

肺非結核性抗酸菌症の手術治療後の感染性胸壁嚢胞の1例を経験した。肺手術治療に際しては、十分な創部洗浄や、病巣の完全切除を行うことが必要であるとともに、抗菌化学療法による周術期治療の重要性が再認識された症例であった。

なお、本論文の要旨は第85回日本臨床外科学会総会(2023年11月、岡山)にて発表した。

利益相反：なし

文 献

- 1) Falkinham JO 3rd : Ecology of nontuberculous mycobacteria--where do human infections come from? Semin Respir Crit Care Med 2013 ; 34 : 95-102
- 2) Schildkraut JA, Gallagher J, Morimoto K, et al : Epidemiology of nontuberculous mycobacterial pulmonary disease in Europe and Japan by Delhi estimation. Respir Med 2020 ; 173 : 106164
- 3) Wang PH, Pan SW, Shu CC, et al : Mycobacterium avium complex lung disease without initial treatment. Respir Med 2020 ; 171 : 106070
- 4) Daley CL, Iaccarino JM, Lange C, et al : Treatment of Nontuberculous Mycobacterial Pulmonary Disease : An Official ATS/ERS/ESCMID/IDSA Clinical Practice Guideline. Clin Infect Dis 2020 ; 71 : e1 - e36
- 5) Mitchell JD : Surgical Treatment of Pulmonary Nontuberculous Mycobacterial Infections. Thorac Surg Clin 2019 ; 29 : 77 - 83

- 6) 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
- 7) Shishido Y, Hamakawa H, Minami K, et al : Chest wall pseudotumor : a case of non-tuberculous mycobacterial infection. BMC Infect Dis 2021 ; 21 : 196
- 8) Mhask AN, Mhask S, Harke S, et al : Post Surgical Non-tuberculous Mycobacterium : A Case Series. Cureus 2022 ; 14 : e24701
- 9) Shah AK, Gambhir RPS, Hazra N, et al : Non tuberculous mycobacteria in surgical wounds- a rising cause of concern? Indian J Surg 2010 ; 72 : 206 - 210
- 10) Bhalla GS, Grover N, Singh G, et al : Prevalence of non tuberculous mycobacterial infection in surgical site infections and their antibiotic susceptibility profile. Med J Armed Forces India 2021 ; 77 : 343 - 348
- 11) 本野 望, 保坂靖子, 富樫賢一 : 非結核性抗酸菌症に対する手術療法の意義. 日呼外会誌 2012 ; 26 : 17 - 20
- 12) 小橋吉博, 岡三喜男 : ガイドラインに沿った治療が行われた肺 *Mycobacterium avium* complex 症の長期追跡調査. 結核 2008 ; 83 : 779 - 784

A CASE OF A LATE-ONSET INFECTED CHEST WALL CYST AFTER SURGICAL TREATMENT FOR PULMPNARY NONTUBERCULOUS MYCOBACTERIAL DISEASE

Kiyoshige YAMAMOTO¹⁾, Hisashi ISHIKURA¹⁾, Kai MIZOBUCHI¹⁾,
Daisuke MATSUMOTO¹⁾ and Takahiko KASAI²⁾

Departments of Surgery¹⁾ and Pathology²⁾, Tokushima Red Cross Hospital

The patient was a 68-year-old man. He was treated with antimicrobial chemotherapy for pulmonary nontuberculous mycobacterial (NTM) disease during the half year at the age of 57. He developed hemoptysis and underwent thoroscopic resection of the right upper lobe at 58 years old. He refused to undergo postoperative chemotherapy. About one year later, a cyst with a membrane appeared just below the port site under the right scapula, and we excised it under local anesthesia. Pathologically, there were no specific changes in the cyst wall and thickened fibrous pleura was diagnosed. Ziehl-Neelsen staining and acid-fast bacillus culture of the fluid were negative, and we diagnosed the case as a chest wall hernia based on the clinical course. Eight years after excision of the cyst, the same area was found to be re-inflated. The lesion was more extensive than before. Under general anesthesia, we resected the cyst with a hard fibrous membrane completely. Thoroscopic examination revealed no abnormalities in the pleura or thoracic cavity. *Mycobacterium avium* was detected in a cyst wall culture and PCR, we diagnosed the case as late-onset infected chest wall cyst. Although chest wall infection after thoroscopic surgery for NTM is rare especially by slow-growing bacteria, it should be kept in mind, and we reaffirmed the importance of pre- and postoperative antibacterial chemotherapy.

Key words : pulmonary nontuberculous mycobacterial disease, chest wall cyst, surgical site infection