

化膿性海綿静脈洞血栓症，細菌性髄膜炎をきたした Lemierre 症候群の 33 歳男性例

澁谷 航平¹⁾ 五十嵐修一^{1)*} 佐藤 朋江¹⁾
新保 淳輔¹⁾ 佐藤 晶¹⁾ 山崎 元義¹⁾²⁾

要旨：症例は 33 歳男性である。頸部痛，右眼の眼球突出にて当科を受診した。右眼の外転制限，眼球突出をみると，髄膜刺激徴候が陽性であった。頭部造影 CT では，両側海綿静脈洞で造影欠損をみると，頭頸部 MRI では，T₂ 強調画像で左内頸静脈にそって高信号病変をみとめた。頸部 CT では左内頸静脈は完全閉塞している所見であった。髄液検査では多形核球優位細胞増多をみとめた。メロペネム，クリンダマイシンで軽快し，第 18 病日退院となった。本症例は Lemierre 症候群に化膿性海綿静脈洞血栓症と髄膜炎を併発したと考えた。退院後に septic emboli により肺膿瘍を発症した。早期かつ十分量の適切な抗生剤治療が重要と考えた。

(臨床神経 2012;52:782-785)

Key words：Lemierre 症候群，化膿性海綿静脈洞血栓症，細菌性髄膜炎，眼球突出，血栓性内頸静脈炎

はじめに

Lemierre 症候群は健常な若年者に発症し，喉頭・咽頭や歯科領域の細菌感染が誘因となり，感染性内頸静脈血栓症が誘発され様々な症状をひきおこす。治療の遅れが死につながるうる疾患として 1936 年に Lemierre らにより報告された¹⁾。われわれは生来健康な若年男性に発症し化膿性海綿静脈洞血栓症，細菌性髄膜炎を併発した Lemierre 症候群の 1 例を経験したので報告する。

症 例

症例：33 歳，男性

主訴：後頸部痛，右眼の眼球突出

既往歴：片頭痛。

現病歴：2011 年 1 月上旬より，左頸部痛が出現し，しだいに増強するため 3 日後に近医整形外科を受診した。対症療法をされたが，その後，頭痛が強くなり他院救急外来にて頭部単純 CT 撮影されるも異常なく，鎮痛薬が処方された。発症 7 日目から右眼の充血と眼球突出を自覚し，発症 8 日に整形外科再診し，同日当科に紹介となった。

入院時所見：体温 37.6℃。悪寒・戦慄をみると，表情は苦悶様で，左耳介後部から後頸部にかけて自発痛および圧痛をみとめた。神経学的所見は，意識清明で，項部硬直，Kernig sign

陽性と髄膜刺激徴候をみとめた。右眼球突出，右眼瞼腫脹，右眼視力低下をみると，右眼外転制限，下転制限があり複視をみとめた (Fig. 1)。

検査所見：血液検査では WBC 29,720/μl，CRP 30.13mg/dl と炎症所見が高度に上昇し，FDP 18.0μg/ml，D-dimer 6.4μg/ml と凝固系の異常もみとめた。脳脊髄液検査をおこない初圧 26cmH₂O で，細胞数 618/μl (多形核球 421，リンパ球 144，単球 53)，糖 35mg/dl (同時血糖 126mg/dl) であった。頭部造影 CT では，両側海綿静脈洞には血栓によるものと思われる造影欠損をみると (Fig. 2a)，右上眼静脈はやや拡張し造影効果が不良であった (Fig. 2b)。頸部 CT では左内頸静脈は頸静脈孔から鎖骨下静脈との合流部まで造影されず，血栓化していると考えられた (Fig. 2c, d)。頸部 MRI では，T₂ 強調画像で左内頸静脈にそって高信号病変をみると，炎症の波及が示唆された (Fig. 2e)。

入院後経過：左内頸静脈の化膿性血栓性静脈炎，化膿性海綿静脈洞血栓症，細菌性髄膜炎をきたしていると考え，細菌性髄膜炎の治療に準じて，メロペネム 6g/日，デキサメタゾン 13.2mg/日で治療開始した。静脈血栓症に対してヘパリン 10,000 単位/日も開始した。血液培養から口腔内常在菌である *Streptococcus intermedius* が検出された。嫌気性菌の混合感染の可能性も考慮しクリンダマイシン 1,200mg/日も開始した。その後薬剤性肝障害のため，クリンダマイシンは中止とし，メロペネムも徐々に減量していった。炎症反応も陰転化し，右眼瞼腫脹，右眼外転制限などの眼症状も改善したため，

*Corresponding author: 新潟市民病院脳神経内科 [〒950-1197 新潟市中央区鐘木 463-7]

¹⁾新潟市民病院脳神経内科

²⁾現 新潟県立十日町病院神経内科

(受付日：2012 年 4 月 2 日)

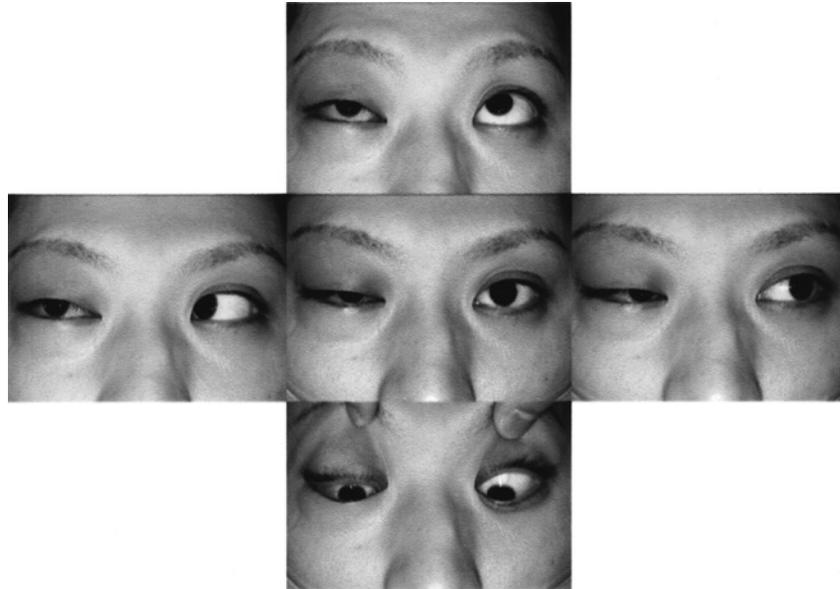


Fig. 1 Eye movement of the patient.

His right eye showed slight exophthalmos and swelling of the eyelid. Lateral and inferior gaze of his right eye movement was disturbed.

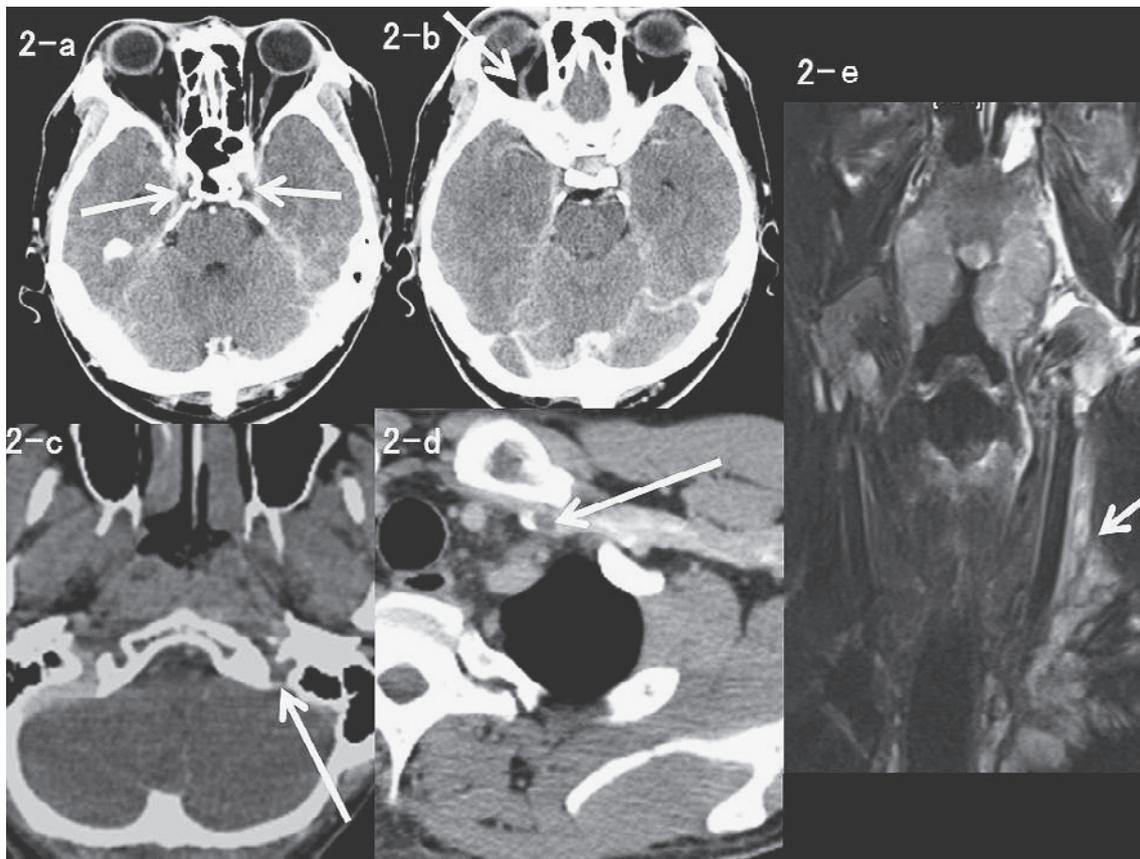


Fig. 2 Contrast-enhanced CT and Cervical MRI findings

Contrast-enhanced brain CT: There was no abnormal density lesion in the brain parenchyma, however; there was lack of enhancement of the cavernous sinus (2a), superior ophthalmic vein (2b), and left internal jugular vein (2c). Thoracic contrast-enhanced CT showed partial lack of enhancement of the subclavian vein which suggested the existence of thrombosis (2d).

Cervical MRI: T₂ weighted image (Axial, 1.5T; TR 4,000ms, TE 77ms) showed a high-intensity signal along his left internal jugular vein, which suggested the existence of soft tissue inflammation (2e).

入院第18病日に退院となった。しかし、第35病日、背部痛、左胸痛を訴え、当院呼吸器内科を受診し、多発肺膿瘍の診断で再入院した。ドリベネム 0.5g×3/日を2週間おこない、炎症反応は陰転化し、画像上も膿瘍の縮小をみとめた。その後、アモキシシリン水和物・クラブレン酸カリウム内服に変更し、退院となった。

考 察

Lemierre 症候群は喉頭・咽頭や歯科領域の細菌感染が誘因となり、感染性内頸静脈血栓症、septic emboli をひきおこし様々な症状をひきおこし、治療の遅れが死につながりうる疾患として1936年にLemierreらにより報告された¹⁾²⁾。septic emboli は肺がもっとも多いが、脾臓や肝臓などその他の臓器にも生じることがある³⁾⁴⁾。肺塞栓は咳、呼吸困難、胸痛、咯血などの症状で発症し、Lemierre 症候群の79~100%に生じるといわれている⁵⁾。SinaveらはLemierre 症候群の97%に肺塞栓が生じるという報告をしている⁶⁾。起因为は *Fusobacterium necrophorum* などの嫌気性菌が多いが、本例のように連鎖球菌が起因为となる報告例も散見される。抗菌薬が登場するまでは致死率90%以上の致死性の疾患であったが、抗菌薬の登場により発症頻度は激減し forgotten disease といわれていた。しかし、耐性菌出現にともなう抗菌薬使用を制限する傾向からここ数年は報告が増えてきている³⁾。現在の致死率は約10%程度といわれ、早期かつ適切な抗菌薬治療が重要とされている⁴⁾。*F. necrophorum* はペニシリンGに感受性があるが、耐性菌の可能性もあり、嫌気性菌に対してカバーできるクリンダマイシンやメトロニダゾールが併用される。3~6週間の入院での抗菌薬治療が必要とされている⁷⁾。

本例では誘因は不明だが、感染性左内頸静脈血栓症にはじまり、その感染が頭蓋底に波及し、化膿性海綿静脈洞血栓症と細菌性髄膜炎を併発したと考えた。Lemierre 症候群に化膿性海綿静脈洞血栓症を合併するという報告は散見され、Yamaguchiらは本症例と同様に化膿性海綿静脈洞血栓症を併発し眼瞼下垂を呈した例を報告している⁸⁾⁹⁾。Le Monnierらは *F. necrophorum* に起因した小児25例のLemierre 症候群を検討し、そのうちの4症例(16%)で、化膿性海綿静脈洞血栓症、髄膜炎を併発したと報告している¹⁰⁾。本症例は嫌気性菌をカバーした抗菌薬治療にて症状は改善したが、退院後に肺に septic emboli をおこし、再入院となった。経過中に肺病変ふ

くめ、septic emboli をきたしうる病変の検索が必要であったと考えられた。Lemierre 症候群は多彩な症状を呈し、診断の遅れが致命的となるため、臨床所見から本症をうたがったばあい、適切な画像診断と起因为菌同定のための検査をおこない、すみやかに適切かつ十分量の抗菌薬治療をおこなうことが重要と考えられた。

※本論文に関連し、開示すべきCOI状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

文 献

- 1) Lemierre A. On certain septicaemias due to anaerobic organisms. *Lancet* 1936;227:701-703.
- 2) Lai C, Vummidi DR. Lemierre's Syndrome. *N Engl J Med* 2004;350:e14.
- 3) Albilal JB, Humber CC, Clokie CM, et al. Lemierre Syndrome from an Odontogenic Source: A review for Dentists. *J Can Dent Assoc* 2010;76:a47.
- 4) Shibasaki YW, Yoshikawa H, Idezuka J, et al. Cerebral Infarctions and Brain Abscess due to Lemierre Syndrome. *Internal Medicine* 2005;6:653-656.
- 5) Riordan T, Wilson M. Lemierre's syndrome: more than a historical curiosa. *Postgrad Med J* 2004;80:328-334.
- 6) Sinave CP, Hardy GJ, Fardy PW. The Lemierre syndrome: suppurative thrombophlebitis of the internal jugular vein secondary to oropharyngeal infection. *Medicine (Baltimore)* 1989;68:85-94.
- 7) Bang YY, Kim JT, Chang WH, et al. Lemierre Syndrome. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2011;44:437-439.
- 8) Westhout F, Hasso A, Jalili M, et al. Lemierre syndrome complicated by cavernous sinus thrombosis, the development of subdural empyemas, and internal carotid artery narrowing without cerebral infection. *Case report. J Neurosurg* 2008;106:53-56.
- 9) Yamaguchi M, Nishizawa H, Yasumoto T, et al. Lemierre Syndrome with blepharoptosis. *Inter Med* 2010;49:753-757.
- 10) Le Monnier A, Jamet A, Carbonnelle E, et al. *Fusobacterium necrophorum* middle ear infections in children and related complication: report of 25 cases and literature review. *Pediatr Infect Dis J* 2008;27:613-617.

Abstract**A case of Lemierre syndrome associated with infectious cavernous sinus thrombosis and septic meningitis**

Kouhei Shibuya, M.D.¹⁾, Shuichi Igarashi, M.D. Ph.D.¹⁾, Tomoe Sato, M.D.¹⁾,
Junsuke Shinbo, M.D.¹⁾, Aki Sato, M.D. Ph.D.¹⁾ and Motoyoshi Yamazaki, M.D.^{1,2)}

¹⁾Department of Neurology, Niigata City General Hospital

²⁾Department of Neurology, Toukamachi Hospital, Niigata Prefectural Hospital

A 33-year-old man was admitted to our hospital because of right exophthalmos, diplopia and left neck pain. Neurological examination revealed lateral and inferior disturbance of his right eye movement and the meningeal irritation sign. Cerebrospinal fluid showed elevated polynuclear cells. Enhanced CT and MRI revealed thrombophlebitis of the left internal jugular vein and bilateral cavernous sinuses. On the basis of these findings, he was diagnosed as having Lemierre syndrome associated with cavernous sinus thrombophlebitis and bacterial meningitis. After administration of antibiotics, his symptoms disappeared and the data of laboratory analyses also improved. However, after his discharge, he was required re-antibiotics therapy because of septic embolus-induced multiple lung abscesses. Lemierre syndrome is characterized by disseminated abscesses and thrombophlebitis of the internal jugular vein after infection of the oropharynx. Because Lemierre syndrome is potentially life-threatening, early diagnosis and initiation of appropriate therapy are important.

(Clin Neurol 2012;52:782-785)

Key words: Lemierre syndrome, infectious cavernous sinus thrombosis, septic meningitis, exophthalmos, thrombophlebitis of the left internal jugular vein
