
 症 例 報 告

細菌性髄膜炎を契機に診断された先天性皮膚洞の一例

原田 瑞生¹・鈴木 博^{1,2}・白井 崇準¹・小嶋 絹子^{1,2}・板垣 成孝¹・和田 雅樹^{1,2}

井口 英幸³・大橋 伯³・大塚 岳人³・齋藤 昭彦³

¹魚沼基幹病院 小児科 新潟大学大学院医歯学総合研究科

²魚沼地域医療教育センター

³小児科学分野

Congenital Dermal Sinus Recognized by an Episode of Bacterial Meningitis

Mizuki HARADA¹, Hiroshi SUZUKI^{1,2}, Takatoshi SHIRAI¹, Kinuko KOJIMA^{1,2}, Shigetaka ITAGAKI¹,
Masaki WADA^{1,2}, Hideyuki IGUCHI³, Tsukasa OHASHI³, Taketo OTSUKA³ and Akihiko SAITOH³

¹ Department of Pediatrics, Unuma Kikan Hospital

² Unuma Institute of Community Medicine,

³ Department of Pediatrics, Niigata University Graduate School of Medical and Dental Sciences

要 旨

症例は10ヶ月の男児。発熱とけいれんを主訴に当院に入院した。*Haemophilus influenzae type b* (Hib) ワクチンおよび肺炎球菌ワクチンは接種済み。健診で異常を指摘されたことはなかった。入院時、多核球優位の髄液細胞数増多を認め、細菌性髄膜炎と診断された。セフトリアキソン、バンコマイシン、デキサメタゾンで治療を開始され、一旦は解熱したが、入院4日目から再度発熱した。腰仙部中央に痂皮形成を伴う発赤があり、痂皮下に軽微な陥凹を認めたため腰部MRIを施行した。皮膚洞、硬膜内に連続する嚢状構造物を認め、先天性皮膚洞と硬膜内膿瘍が疑われた。入院8日目の髄液検査では再度細胞数の増多を認めた。標準的な抗菌薬治療でも解熱せず、外科的介入が必要と判断された。入院11日目に高次医療機関に転院し、皮膚洞と嚢胞を摘出された。転院後の髄液培養で *Staphylococcus lugdunensis* が検出された。病理の結果、先天性皮膚洞、類皮嚢胞と診断された。術後経過は良好で転院26日目に退院した。術後の運動発達は良好で、1歳で独歩を獲得している。

本症例は髄膜炎が先天性皮膚洞発見の契機となった。非感染時の皮膚症状が軽微で健診では確認が困難であったが、入院時の診察で皮膚異常を認めたことで診断に至った。先天性皮膚洞は早期発見と介入が重要である。皮膚所見が軽微でも、殿裂内にない陥凹等のリスクのある症

Reprint requests to: Hiroshi SUZUKI
Department of Pediatrics,
Unuma Kikan Hospital,
4132 Urasa, Minami Unuma City,
Niigata 949-7302, Japan.

別刷請求先：〒949-7302 新潟県南魚沼市浦佐 4132
魚沼基幹病院 小児科

鈴木 博

例を見逃さないことが大切と考えられた。Hib、肺炎球菌ワクチン接種済みの症例や通常想定されない起因菌の細菌性髄膜炎では、解剖学的異常を含めた基礎疾患の可能性を特に考えるべきである。

キーワード：先天性皮膚洞、細菌性髄膜炎、*Staphylococcus lugdunensis*

はじめに

Haemophilus influenzae type b (Hib) ワクチン、および肺炎球菌ワクチンの定期接種化により生後2ヶ月以上の小児の細菌性髄膜炎の頻度は著しく減少している¹⁾。一方、近年は髄膜炎罹患児の40%以上が基礎疾患を有するとの報告もある²⁾。

先天性皮膚洞は神経管正中中に形成される細い小孔で重層扁平上皮に覆われる。脊髄内との連続性があると髄膜炎に罹患するリスクもある。健診時に皮膚所見で発見されることも多いが、皮膚所見が軽微であると発見が困難となる。

今回我々は細菌性髄膜炎を契機として診断された先天性皮膚洞、類皮嚢胞を経験したので、文献的考察を加え、報告する。

症例報告

【症例】 10ヶ月、男児。

【主訴】 発熱、けいれん。

【出生歴・既往歴】

38週6日、3188g。正常経膈分娩で出生し、周産期異常なし。健診での異常は指摘されていない。便秘症あり。痙攣の既往なし。腰部に痂皮形成を伴う発赤を繰り返していたが、自然軽快していた。

【予防接種歴】

Hib ワクチン3回、13価肺炎球菌結合型ワクチン3回、4種混合ワクチン3回、B型肝炎ワクチン3回、ロタウイルスワクチン2回、BCG ワクチンを接種済。

【現病歴】

入院前日の昼から38度台の発熱と嘔吐を認め、近医を受診した。急性胃腸炎と診断され、整腸剤の処方を受けた。入院当日の未明に15分間の眼球上転を伴う左右対称性の全身けいれんを認め、

救急搬送された。けいれんは自然に頓挫したが、精査加療のため入院した。

【身体所見】

身長 71.2 cm (-0.6SD)、体重 8.6 kg (-0.6SD)、肥満度 -1.1%

体温 39.5度 血圧 100/53 mmHg、心拍数 185回/分、SpO₂ 99%、呼吸数 34回/分

意識清明。大泉門軽度膨隆あり。胸部聴診上肺雑音なし、心雑音なし。腹部は平坦、軟。

末梢冷感なし。毛細血管充満時間1秒未満。

左前額部にポートワイン母斑あり。項部硬直なし。腰仙部中央に痂皮形成を伴う発赤があり、痂皮下に軽微な陥凹を認めた(図1)。

四肢に明らかな麻痺症状なし。

【検査所見】

<血液生化学> WBC 18100/μl (Neut 73.5%, Lymph 21.2%), RBC 437 × 10⁴/μl, Hb 10.3 g/

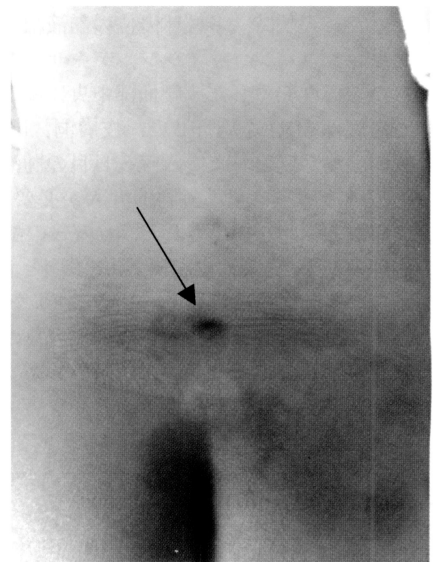


図1 入院後身体所見：腰部に痂皮形成を伴う皮膚発赤あり(矢印)。

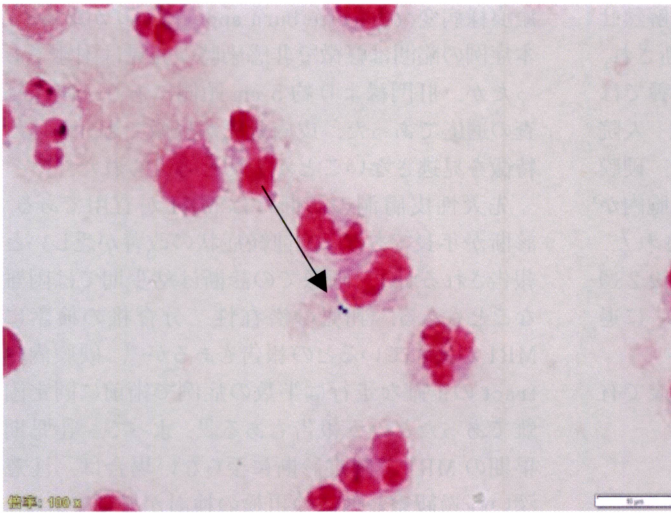


図2 当院入院時髄液のグラム染色：多数の好中球と少数のグラム陽性球菌（矢印）を認める。



図3 腰部造影MRI：硬膜内に連続する皮膚洞と嚢状構造物を認める（矢印）。

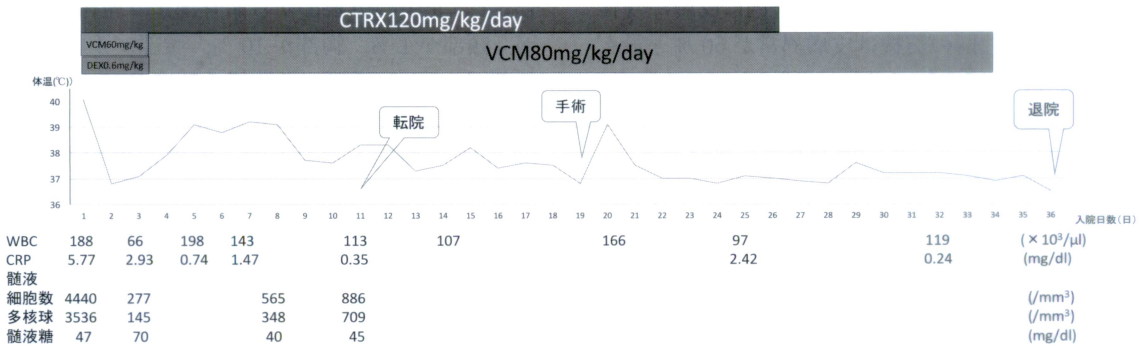


図4 臨床経過

(CTR:セフトリアキソン, VCM:バンコマイシン, DEX:デキサメタゾン)

dl, Ht 29.2 %, Plt $33.0 \times 10^4/\mu\text{l}$, AST 61 IU/l, ALT 30 IU/l, LDH 281 IU/l, BUN 7.1 mg/dl, Cre 0.19 mg/dl, Na 135 mEq/l, K 3.7 mEq/l, Cl 102 mEq/l, CRP 5.77 mg/dl, Glu 117 mg/dl
 <尿検> 蛋白土, 白血球-, 亜硝酸- <髄液> 強混濁 総細胞数 $4440/\text{mm}^3$, 単核球 $904/\text{mm}^3$, 多核球 $3536/\text{mm}^3$, 蛋白 48 mg/dl, 糖 47 mg/dl
 グラム染色: グラム陽性球菌を少数認める(図2).

<頭部CT・MRI> 異常なし。

【入院後経過】(図4)

髄液検査のグラム染色でグラム陽性球菌を認

め、細菌性髄膜炎と診断した。セフトリアキソン 120 mg/kg/day, バンコマイシン 60 mg/kg/day, デキサメタゾン 0.6 mg/kg/day の治療を開始した。入院翌日から解熱し、髄液細胞数も低下した。抗菌薬は有効と判断されたが、入院4日目から再度発熱した。入院5日目に腰部の皮膚異常の精査のため撮像された腰部MRIでは、L5付近に皮膚洞、硬膜内に連続する嚢状構造物を認め(図3)、当初は先天性皮膚洞と硬膜内膿瘍が疑われた。入院時の血液、髄液培養では起病菌は検出されなかった。入院8日目の髄液検査では再度細胞

数の増多を認めた。適切な抗菌薬治療でも解熱せず、皮膚洞、嚢胞構造物の摘出が必要と判断され、入院11日目に転院した。転院後の髄液培養では *Staphylococcus lugdunensis* が検出された。入院19日目(転院9日目)に手術を施行された。硬膜を貫通する皮膚洞、嚢胞を摘出された。嚢胞内からは毛髪を認め、病理で類皮嚢胞と診断された。術後の経過は良好で、バンコマイシンを術後2週間継続された。入院36日目(転院26日目)に退院した。(図4)

退院後の精神運動発達は良好であり、1歳で有意語、独歩を獲得している。

考 察

先天性皮膚洞は潜在性神経管閉鎖不全症の一種である。胎生3-5週頃の神経管形成時に皮膚外胚葉の分離閉鎖が障害され、神経管内に皮膚が残存して生じる。診断の契機は皮膚異常が50%と最も多いが、11~37.5%が感染と報告されている³⁾⁻⁵⁾。約30%が神経学的異常(運動麻痺、感覚障害、膀胱直腸障害など)を契機として診断される³⁾。一方で皮膚異常を契機に初診した患者の半分以上に何らかの神経学的所見を認めるとする報告もある⁵⁾。1歳以降に診断された児と比較して、1歳未満で診断された児の方が神経学的予後は良いと報告されており⁵⁾、早期発見が予後を改善する可能性がある。また皮膚洞は髄内へ連続し、髄膜炎を合併し得る。早期発見と介入が重要である。

本症例では、非感染時の皮膚症状が軽微なため、皮膚洞を発見できなかった。皮膚洞と区別すべきものとして、単純な殿裂内の陥凹(dimple)がある。これは出生児全体の2-4%に認められる頻度の多い皮膚所見である⁶⁾。軽微な陥凹が多く、ほとんどで合併症を認めない。Weprinらは殿裂内の陥凹単独でその他の皮膚所見を伴わない場合は、脊髄合併症の可能性は非常に低く、画像精査の適応はないとしている⁵⁾。一方で画像精査を要する症例の特徴として皮下腫瘍や脂肪腫、有毛性の色素斑、深さ5mm以上、肛門縁から25mm以上の非典型的なくぼみ、血管腫、毛細血管拡張、

癩痕様病変(cigarette burn appearance)がある⁷⁾。本症例の陥凹は軽微で非感染時の発見は困難であったが、肛門縁より約5cm頭側にあり、画像精査の適応であった。皮膚所見が軽微でも、前述の特徴を見逃さないことが大切と考えられた。

先天性皮膚洞の診断にはMRIが有用である。診断が年長であるほど神経症状の改善が乏しいと報告されるが⁵⁾、画像での診断は幼少期では困難なこともある。乳児の潜在性二分脊椎の検索にMRIが優れているとの報告もあるが⁸⁾、硬膜内のtractの正確な走行は半数の症例で術前に同定困難であったという報告もある⁹⁾。よって、乳児期早期のMRIで確定診断に至らない場合は、注意深い経過観察と画像の再検の検討が必要である。

本症例の先天性皮膚洞は腰仙部にあり、硬膜内へ連続し、類皮嚢胞を合併した。先天性皮膚洞は2500人に1人の頻度と報告されている。発生部位としては正中の鼻根部から仙骨部まで報告があるが、頸部が1%、胸部が10%、腰部が40%、腰仙部が35%と腰部~腰仙部の頻度が高い。皮膚洞の断端は6-7%が脊椎管外、10-20%が硬膜外、60%が硬膜内へ連続し¹⁰⁾、皮膚洞の約半数はmass(脂肪腫、類皮嚢胞や類表皮嚢胞)を合併する。本症例はこれらの点で典型的な所見を示した。

本症例は皮膚洞から経皮的に類皮嚢胞が感染し髄膜炎を発症したと考えた。また、転院後の髄液培養で *S. lugdunensis* が検出され、起炎菌と判断した。*S. lugdunensis* はコアグラールゼ陰性ブドウ球菌の一種であるが、その中では重症な感染症を引き起こす。感染性心内膜炎、カテーテル感染、関節炎・骨髄炎の起炎菌としての報告が多いが、髄膜炎の発症はシャント感染¹¹⁾と術後¹²⁾など基礎疾患のある症例の報告があり、今回の起炎菌になり得ると考えた。過去の皮膚洞感染症例では、*Staphylococcus aureus* が硬膜内嚢胞¹³⁾や髄液培養で検出された報告がある¹⁴⁾。乳幼児後期の細菌性髄膜炎の起炎菌は肺炎球菌とHibの頻度が高いが、これらは予防接種による予防効果が期待できる。本症例も肺炎球菌とHibの予防接種を受けていた。Hib、肺炎球菌ワクチン接種済みの症例や通常想定されない起炎菌の細菌性髄膜炎では、

解剖学的異常を含めた基礎疾患の可能性を特に考えるべきである。

当院入院時の髄液グラム染色でグラム陽性球菌が検出されたが、培養では有意菌が検出されなかった。また当院入院時の血液や転院後摘出した嚢胞の培養でも有意な菌は検出されなかった。一方、転院後の髄液培養では *S. lugdunensis* が検出された。この理由を明確にするのは難しいが、類皮嚢胞局所の感染が主であり髄液中の培養での菌検出が困難であったのかもしれない。本例で検出された菌の感受性試験ではバンコマイシンに感受性があり、血中濃度も適正範囲内で投与され、当初の抗菌薬への反応は認められた。嚢胞局所への移行が不十分なため、最終的に外科的介入が必要と判断した。

謝 辞

本例において診断・治療にご尽力頂きました
魚沼基幹病院 脳神経外科 米岡 有一郎 特任教授、
秋山 克彦、関 義弘 先生
新潟大学医歯学総合病院 脳神経外科 藤井 幸彦 教授、
吉村 淳一、中村 公彦 先生に深謝致します。

文 献

- 1) Thigpen MC, Whitney CG, Messonnier NE, Zell ER, Lynfield R, Hadler JL, Harrison LH, Farley MM, Reingold A, Bennett NM, Craig AS, Schaffner W, Thomas A, Lewis MM, Scallan E and Schuchat A : Bacterial meningitis in the United States, 1998–2007. *N Engl J Med* 364: 2016–2025, 2011.
- 2) Nakamura A, Kuroki H, Ohshima H, Sugioka T, Ishiwada N, Takeda N, Aizawa J and Ohkusu K : Clinical analysis of patients with bacterial meningitis in childhood and reevaluation of rapid antigen detection methods. *Kansenshogaku Zasshi* 73: 901–908, 1999.
- 3) Radmanesh F, Nejat F and El Khashab M: Dermal sinus tract of the spine. *Childs Nerv Syst* 26: 349–357, 2010.
- 4) Singh I, Rohilla S, Kumar P and Sharma S: Spinal dorsal dermal sinus tract: An experience of 21 cases. *Surg Neurol Int* 6: S429–434, 2015.
- 5) Ackerman LL and Menezes AH: Spinal congenital dermal sinuses: a 30-year experience. *Pediatrics* 112: 641–647, 2003.
- 6) Weprin BE and Oakes WJ: Coccygeal pits. *Pediatrics* 105: E69, 2000.
- 7) Kliegman RM: *Nelson Textbook of Pediatrics*. 20th edition, Elsevier, Philadelphia, p2803–2805, 2016.
- 8) O'Neill BR, Gallegos D, Herron A, Palmer C, Stence NV, Hankinson TC, Corbett Wilkinson C and Handler MH : Use of magnetic resonance imaging to detect occult spinal dysraphism in infants. *J Neurosurg Pediatr* 19: 217–226, 2017.
- 9) Tisdall MM, Hayward RD and Thompson DN: Congenital spinal dermal tract: how accurate is clinical and radiological evaluation? *J Neurosurg Pediatr* 15: 651–656, 2015.
- 10) R. IYJ: *Neurological Surgery*. 4th edition, W. B. Sanders Company, Philadelphia, p. 883–888, 1996.
- 11) Li YM, Blaskiewicz DJ and Hall WA: Shunt-related intracranial abscess caused by *Staphylococcus lugdunensis* in a hydranencephalic patient. *World Neurosurg* 80: e387–389, 2013.
- 12) Kaabia N, Scauarda D, Lena G and Drancourt M: Molecular identification of *Staphylococcus lugdunensis* in a patient with meningitis. *J Clin Microbiol* 40: 1824–1825, 2002.
- 13) Akhtar S, Azeem A, Shamim MS and Tahir MZ: Composite split cord malformation associated with a dermal sinus tract, dermoid cyst, and epidural abscess: A case report and review of literature. *Surg Neurol Int* 7: 43, 2016.
- 14) Morgenstern Isaak A, Bach Faig A, Martínez S, Martín-Nalda A, Vázquez Méndez E, Pumarola Segura F and Soler-Palaćin P: Recurrent meningitis due to anatomical defects: The bacteria indicates its origin. *An Pediatr (Barc)* 82: 388–396, 2015.

(平成 30 年 3 月 13 日受付)