

〈症例報告〉

無症候性の可逆性脳梁膨大部病変を呈した肺炎の1例

山田 治来¹⁾, 上中 大地²⁾, 黒川 勝己³⁾, 和田 健二⁴⁾, 友田 恒一¹⁾

- 1) 川崎医科大学総合内科学1
- 2) 川崎医科大学総合医療センター臨床教育研修センター
- 3) 川崎医科大学神経内科学,
- 4) 同 認知症学

抄録 熱性疾患罹患中に、異常言動・行動、意識障害、痙攣などの神経症状を呈し、可逆性脳梁膨大部病変を認める病態は、可逆性脳梁膨大部病変を有する軽症脳炎・脳症 (clinically mild encephalitis / encephalopathy with a reversible splenial lesion ; MERS) として知られている。我々は、肺炎罹患中に、神経症候を認めない可逆性脳梁膨大部病変を呈した症例を経験したので報告する。患者は37歳、男性。肺炎発症前に、交通事故による脳震盪のエピソードがあった。その後、発熱と湿性咳嗽を生じた。脳震盪のフォローアップ目的で頭部MRIを施行し、脳梁膨大部病変を認めた。神経学的所見は異常を認めなかった。胸部X線および胸部CTでは、左肺下葉に肺炎像を認めた。肺炎に対して、抗菌薬投与を行い、改善を認めた。第35病日の頭部MRIでは脳梁膨大部病変が消失しており、可逆性の脳梁膨大部病変と診断した。神経症候を認めない熱性疾患例の中に、本症例のような可逆性脳梁膨大部病変を呈する例が潜んでいる可能性があると考える。

doi:10.11482/KMJ-J202147113 (令和3年6月10日受理)

キーワード：可逆性脳梁膨大部病変、肺炎

緒言

熱性疾患罹患中に、異常言動・行動、意識障害、痙攣などの神経症状を呈し、可逆性脳梁膨大部病変を認める病態は、可逆性脳梁膨大部病変を有する軽症脳炎・脳症 (clinically mild encephalitis / encephalopathy with a reversible splenial lesion ; MERS) として知られている。我々は、肺炎罹患中に、神経症候を認めない可逆性脳梁膨大部病変を呈した症例を経験したので報告する。

症例

患者：37歳、男性。

主訴：発熱、咳。

既往歴：小児期 髄膜炎。

X年8月交通事故による脳震盪のため、当院脳神経外科に15日間入院。

家族歴：特記事項なし。

嗜好：飲酒・喫煙はない。

現病歴：X年11月Y日から発熱と湿性咳嗽が生じていた。11月Y+3日に、当院脳神経外科で脳震盪のフォローアップ目的で頭部MRIを施行したところ、脳梁膨大部病変を認めたため、当科に紹介された。

入院時現症：血圧 152/78 mmHg, 脈拍 18/分・整, 体温 37.4℃

別刷請求先

山田 治来

〒700-8505 岡山市北区中山下2-6-1

川崎医科大学総合医療センター総合内科学1

電話：086 (225) 2111

ファックス：086 (232) 8343

Eメール：haruki@med.kawasaki-m.ac.jp

一般身体所見では、胸部聴診上、左肺で吸気全般期に crackles を聴取した。腹部に異常所見を認めなかった。

神経学的所見では、意識は清明で、改訂長谷川式簡易知能評価スケール (Hasegawa's Dementia Scale-Revised: HDS-R) は30/30, Mini-mental state examination (MMSE) は30/30といずれも正常であった。明らかな失語・失行・失認を認めなかった。脳神経、運動系、腱反射、感覚系、自律神経系、起立・歩行に異常を認めなかった。髄膜刺激徴候はみられなかった。

検査所見: 血液検査では、白血球 $5077/\mu\text{L}$ (好中球 75.1%, リンパ球 14.8%, 好酸球 3.7%, 好塩基球 0.2%), CRP 5.73 mg/dL と、CRP の上昇を認めた。尿中肺炎球菌抗原と尿中レジオネラ

抗原はともに陰性であった。

喀痰培養検査では、 α -Streptococcus 及び非病原性 Neisseria が少数検出された。

血液培養では、有意な細菌は検出されなかった。髄液検査では、細胞数 $4/\mu\text{L}$ (多形核白血球 25%, 単核球 75%), 蛋白 42 mg/dL, 糖 54 mg/dL と軽度の蛋白上昇を認める以外は異常を認めなかった。胸部X線では、左肺下葉に浸潤影を認めた。胸部CT (図1) では、左肺下葉に consolidation を伴う浸潤影を認めた。

頭部MRI (図2) では、拡散強調画像 (diffusion weighted imaging: DWI) で脳梁膨大部の中心域に約1.1cm 大の卵円形の信号変化を認め、同部位はみかけの拡散係数画像 (apparent diffusion coefficient map: ADC map) では低信号、

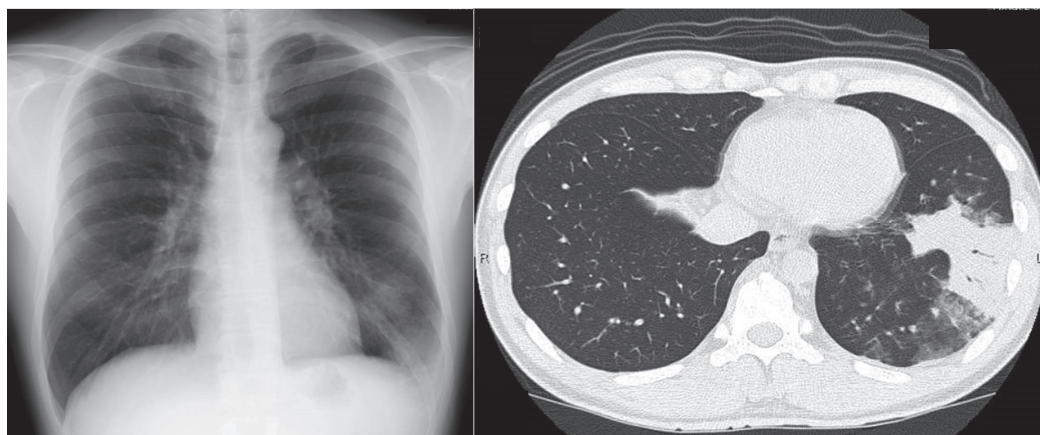


図1 左: 胸部X線, 右: 胸部CT (いずれも第4病日)
左肺下葉に consolidation を伴う浸潤影を認める。

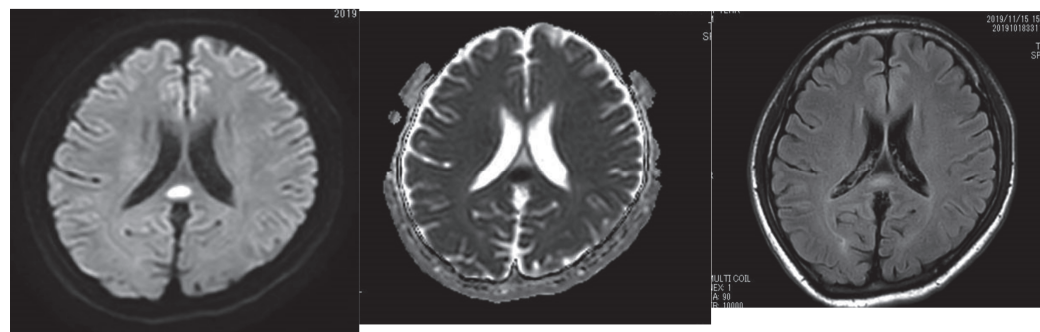


図2 頭部MRI 左: 拡散強調画像 中: ADC map 右: FLAIR 画像
脳梁膨大部の中心域に約 1.1cm 大の卵円形の信号変化を認める。

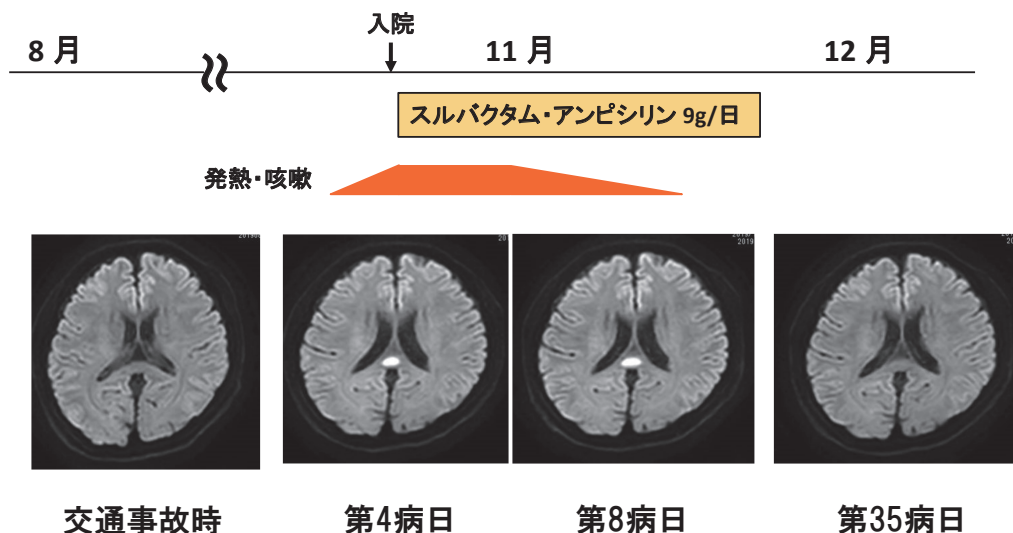


図3 臨床経過

肺炎に対し抗菌薬 SBT/ABPC 投与を開始し、発熱や咳は改善を認めた。

頭部 MRI の経過は、X 年 8 月の交通事故の時点では脳梁膨大部には異常信号を認めず、第 4 病日には高信号域を認め、第 8 病日も高信号域は不変であった。第 35 病日には高信号域が消失した。

fluid-attenuated inversion-recovery (FLAIR) 画像では淡い高信号を呈した。

経過 (図 3) : 肺炎に対し抗菌薬 Sulbactam / Ampicillin (SBT / ABPC) 投与を開始し、発熱や咳、血液検査の CRP 値、胸部 X 線の左肺下葉の浸潤影はいずれも改善を認めた。

頭部 MRI の経過は、X 年 8 月の交通事故の時点では脳梁膨大部には異常信号を認めず、第 4 病日には高信号域を認め、第 8 病日も高信号域は不変であった。第 35 病日には高信号域が消失しており、可逆性の脳梁膨大部病変と診断した。

考 察

本症例のような可逆性脳梁膨大部病変は、Reversible splenic lesion syndrome (RESLES) という名称が提唱されている。原因は感染症、抗てんかん薬の中断、高山病、川崎病、電解質異常 (特に低ナトリウム血症)、低血糖、X 連鎖性 Charcot-Marie-Tooth 病など多岐にわたるが、本症例では感染を伴っているため、MERS などの鑑別が必要と思われた。MERS の診断基準

(図 4) には、神経症状は 12 時間以上持続すると記載されている。また追記には、12 時間以内では MERS syndrome の同一スペクトラムと記載されているが、本症例では全く神経症状がないため、これらの範疇には入らないと思われた¹⁾。

より広い概念として、Kashiwagi らは熱性疾患罹患中の可逆性脳梁膨大部病変 (Reversible splenic lesions during febrile illness ; RESLEF) を提唱している。RESLEF のうち重症例は脳炎、軽症例はせん妄、重症例と軽症例の間は MERS と non MERS に分類している。MERS は意識障害が 12 時間以上持続し、non-MERS は意識が清明あるいは意識障害が 12 時間未満と定義している。小児 22 例 (23 エピソード) で検討したところ MERS が 6 エピソード、non MERS が 17 エピソードあり、1 エピソードは意識障害などはなく、寝言が唯一の神経症候であった²⁾。本症例は神経症候は認めず、RESLEF のスペクトラムの中の軽症例と考えられた。

MERS における脳梁膨大部病変のメカニズムについては、安部らは MERS と診断した 2 症

MERS の診断基準

[臨床像]

- ①発熱後 1 週間以内に異常言動・行動，意識障害，けいれんなどを発症する。
- ②神経症状発症後1か月以内に後遺症なく回復する。
- ③他の神経疾患（急性散在性脊髄炎（ADEM），けいれん重積型（二相性）急性脳炎（AESD），急性小脳炎など）を否定しうる。
- ④神経症状は12時間以上持続する（異常言動・行動は断続的でもよい）

[画像所見]

- ①急性期に脳梁膨大部に拡散強調画像で高信号を呈し，T1，T2信号異常は比較的軽度である。
- ②病変は脳梁膨大部を含み，脳梁全体ないし対称性白質に拡大しうる。
- ③ 2か月以内に消失し信号異常・萎縮を残さない。

[追記]

臨床像④を満たさない症例（意識障害が12時間以内，異常言動・行動が断続的に12時間以内など）も同ースペクトラム（MERS syndrome）と考えられる。

MRI 上の病変が脳梁（少なくとも膨大部を含む）に限局すれば MERS 1 型，脳梁に加え対称性白質病変（中心溝近傍の深部白質に好発し，白質全体に拡大しうる）を有すれば MERS 2 型とする。

小児急性脳症診療ガイドライン2016, pp 115-119

図4 MERS の診断基準

例を magnetic resonance spectroscopy (MRS) で解析したところ，細胞毒性浮腫による髄鞘浮腫が脳梁膨大部に生じている可能性を示唆しており³⁾，宮田らは浮腫の原因としては IL-6をはじめとする炎症性サイトカインが関与している可能性を挙げている⁴⁾。病因は不明であることが多いが，インフルエンザ，ロタ，アデノ，ムンプス，麻疹，帯状疱疹といったウイルスやマイコプラズマ，レジオネラ菌，大腸菌といった細菌感染症による症例も報告されている⁵⁾。最近では，新型コロナウイルス感染症（CoronaVirus Disease, 2019；COVID-19）に併発した MERS の報告もみられる⁶⁾。

調べ得た限りでは，non-MERS を呈する病原微生物に関しての報告はなかった。神経症候を認めない熱性疾患例の中に，本症例のような可逆性脳梁膨大部病変を呈する例が潜んでいる可能性があると考えられる。

結 語

肺炎に伴って生じたと考えられる，神経症候を認めない可逆性脳梁膨大部病変を呈した症例

を経験した。神経症候は認めず，Kashiwagi らの提唱する RESLEF のスペクトラムの中の軽症例と考えられた。神経症候を認めない熱性疾患例の中に，本症例のような可逆性脳梁膨大部病変を呈する例が潜んでいる可能性がある。

本論文の要旨は，第123回日本内科学会中国地方会（2020年10月31日 Web開催）で発表した。

著者の利益相反開示

本論文発表内容に関連して特に申告なし。

引用文献

- 1) 日本小児神経学会監修，小児急性脳症診療ガイドライン策定ワーキンググループ編集：小児急性脳症診療ガイドライン2016, pp115-119.
- 2) Kashiwagi M, Tanabe T, Shimakawa S, *et al.*: Clinico-radiological spectrum of reversible splenic lesions in children. *Brain Dev.* 2014; 36: 330-336. doi: 10.1016/j.braindev.2013.05.007.
- 3) 安部昌宏，前田泰宏，本田隆文，他：脳梁膨大部病変を MR spectroscopy で経時的に観察しえた可逆性脳梁膨大部病変を有する軽症脳症（MERS）の

- 2 例. 脳と発達. 2017; 49: 275-278. doi: 10.11251/ojjsen.49.275
- 4) Miyata R, Tanuma N, Hayashi M, *et al.*: Oxidative stress in patients with clinically mild encephalitis / encephalopathy with a reversible splenial lesion (MERS). *Brain Dev.* 2012; 34: 124-127. doi: 10.1016/j.braindev.2011.04.004.
- 5) Tada H, Takanashi J, Barkovich AJ, *et al.*: Clinically mild encephalitis / encephalopathy with a reversible splenial lesion. *Neurology.* 2014; 63: 1854-1858. doi: 10.1212/01.wnl.0000144274.12174.cb.
- 6) Hayashi M, Sahashi Y, Baba Y, *et al.*: COVID-19-associated mild encephalitis / encephalopathy with a reversible splenial lesion. *J Neurol Sci.* 2020; 415: 116941. doi: 10.1016/j.jns.2020.116941.

〈Case Report〉

A case of pneumonia with asymptomatic reversible splenial lesion

Haruki YAMADA¹⁾, Daichi UENAKA²⁾, Katsumi KUROKAWA³⁾
Kenji WADA⁴⁾, Koichi TOMODA¹⁾

1) Department of General Internal Medicine 1, Kawasaki Medical School

2) Clinical Education and Training Center, Kawasaki Medical School General Medical Center

3) Department of Neurology,

4) Department of Dementia Research, Kawasaki Medical School

ABSTRACT A pathologic condition characterized by in which abnormal speech or behaviors, disturbances of consciousness, convulsions, and reversible splenial lesion while the patient suffers from fever disease is known as a clinically mild encephalitis / encephalopathy with a reversible splenial lesion (MERS). We report a case with reversible splenial lesion without neurological symptoms in a patient suffering from pneumonia. The 37-years old man sustained a concussion in a traffic accident before the onset of the pneumonia. Later, he developed a fever and wet cough. A follow-up brain MRI after the concussion showed a splenial lesion. Neurological examination revealed no abnormalities. Chest X-ray and CT scan showed pneumonia in left lower lobe. The pneumonia improved after administration of antibiotics. We diagnosed a reversible splenial lesion, because a brain MRI on day 35 revealed the disappearance of the splenial lesion. We believe, cases like this one associated with reversible splenial lesions might be found among patients with febrile diseases without neurological symptoms.

(Accepted on June 10, 2021)

Key words : **Reversible splenial lesion, Pneumonia**

Corresponding author

Haruki Yamada

Department of General Internal Medicine 1, Kawasaki
Medical School General Medical Center, 2-6-1
Nakasange, Kita-ku, Okayama, 700-8505, Japan

Phone : 81 86 225 2111

Fax : 81 86 232 8343

E-mail : haruki@med.kawasaki-m.ac.jp