

報 告

腸腰筋膿瘍を合併した ACTH 依存性 Cushing 症候群の疑い例

東京女子医科大学卒後臨床研修センター

²東京女子医科大学内分泌内科（指導：高野加寿恵教授）イシイ ショウ ツイキ ミカ タナベ アキヨ タカノ カズエ
石井 翔¹・立木 美香²・田辺 晶代²・高野加寿恵²

（受理 平成22年4月28日）

A Case of Probable ACTH-dependent Cushing Syndrome with an Iliopsoas Abscess

Sho ISHII¹, Mika TSUIKI², Akiyo TANABE² and Kazue TAKANO²¹Medical Training Center for Graduates, Tokyo Women's Medical University²Department of Medicine, Institute of Clinical Endocrinology, Tokyo Women's Medical University

A 75-year-old woman with a 20-year history of diabetes mellitus was admitted to our hospital for anorexia, hyperglycemia and unconsciousness. Significant increases in plasma ACTH (339 pg/ml) and cortisol (158.8 μg/dl) levels suggested ACTH-dependent Cushing syndrome. After 2 weeks of medication with metyrapone, the serum cortisol level became normal and hyperglycemia and unconsciousness improved. After discontinuation of metyrapone, the serum cortisol level remained within normal range and was suppressed normally by overnight dexamethasone. Lack of the circadian rhythm of serum cortisol, however, suggested autonomy of cortisol secretion. No pituitary and ectopic lesions producing ACTH were found. A ring enhancing lesion 2 cm in diameter was found in the left iliopsoas muscle, which was diagnosed as iliopsoas abscess. We followed up the patient without surgical drainage or antibiotic therapy because neither backache nor inflammatory signs were present. MRI showed a significant decrease in the size of the iliopsoas abscess, 30 days after admission. Iliopsoas abscess is commonly seen in immunocompromised patients with diabetes mellitus, hepatic cirrhosis or long-term exposure to cortisol. Since patients with Cushing syndrome have a higher risk for infection due to hypercortisolemia and hyperglycemia, and infection symptoms, such as fever tend to be masked, whole body screening for possible infection is recommended.

Key words: Cushing's syndrome, iliopsoas abscess

緒 言

腸腰筋膿瘍は長期ステロイド投与や糖尿病、肝硬変等の易感染性を基礎に発症することが多いとされる。Cushing 症候群では高コルチゾール血症とそれに伴う高血糖により感染症を合併するリスクが高い。今回、高コルチゾール血症に腸腰筋膿瘍を合併した症例を経験したので報告する。

症 例

患者：75歳女性。

既往歴：55歳より高血圧、糖尿病。

嗜好歴：喫煙歴なし、機会飲酒。

現病歴：55歳より糖尿病に対して内服加療中で、

最近の血糖はグリメピリド1mg内服下でHbA1c 6%程度であった。1ヵ月前より食欲不振が出現し、2週間前より意識障害を認めたため前医へ入院となった。入院時検査で随時血糖287mg/dlと高血糖を認め、ACTH 339pg/ml(基準値：7.2~63.3)、コルチゾール(F) 158.8μg/dl(基準値：4.0~18.3)と高値であることから、ACTH依存性Cushing症候群を疑われた。高コルチゾール血症に対してコルチゾール合成阻害薬であるメチラポン750mgを開始され、精査加療目的に当院へ転院となった。

入院時現症：意識JCS I-2、血圧139/86mmHg、脈拍76/分整、体温37.1℃。

表 入院時検査所見

尿定性		生化学			
蛋白	(±)	TP	4.8 g/dl	TG	136 mg/dl
糖	(3+)	Alb	2.7 g/dl	LDL-C	69 mg/dl
潜血	(-)	AST	23 IU/l	FBS	263 mg/dl
		ALT	30 IU/l	HbA1c	8.5 %
血算		LD	531 IU/l	内分泌検査	
WBC	10,870 / μ l	γ -GTP	315 IU/l	ACTH	5.4 pg/ml
Neut	93.8 %	BUN	16.6 mg/dl	(基準値: 7.4-55.7)	
Eos	0.0 %	Cr	0.54 mg/dl	F	49.4 μ g/dl
RBC	4.64×10^6 / μ l	Na	138 mEq/l	(基準値: 4.0-18.3)	
Hb	11.7 g/dl	K	4.0 mEq/l	蓄尿 F	224 μ g/day
Ht	37.2 %	Cl	101 mEq/l	(基準値: 11.2-80.3)	
Plt	10.5×10^4 / μ l	CRP	0.45 mg/dl		

身体所見：身長 149.5cm, 体重 54.5kg, BMI 24.4 kg/m², 頭頸部・胸部・腹部に異常所見なし。中心性肥満, 満月様顔貌, 赤ら顔, 色素沈着, 皮下出血斑, 赤色皮膚線条などの Cushing 徴候なし。

入院時検査所見：表に示す。一般検査では WBC 10,870/ μ l (分画: Neut 93.8%, Eos 0.0%) と好中球優位の WBC 増加と好酸球の低下を認めた。CRP 0.45mg/dl と正常で, FBS 263mg/dl, HbA1c 8.5% と糖尿病を認めた。内分泌検査では ACTH 175.4pg/ml, F 49.4 μ g/dl, 尿中 F 224 μ g/day と上昇を認めた。

胸部レントゲン：CTR62%, 肺野に異常所見なし。

心電図：SR, HR 96/分整, 正軸, ST 変化なし。

経過

入院時明らかな Cushing 徴候は認めなかったが, 入院 1 週間後より顔面の色素沈着と四肢の皮下出血斑が出現した。前医からのコルチゾールの推移を図 1 に示す。入院後よりメチラポンを 750mg から 1,500mg へ増量したところ F は低下傾向となり, それとともに意識障害は改善し入院後約 1 週間で意識は清明となった。第 13 病日には F 14.9 μ g/dl, 蓄尿 F 54.7 μ g/day と正常化したため, メチラポンを漸減・中止とした。その後も増悪なく推移し, 第 38 病日には ACTH 30.5pg/ml, F 11.8 μ g/dl, 蓄尿 F 26.4 μ g/day といずれも正常化した。正常化後の負荷試験は, デキサメタゾン抑制試験では 0.5mg 負荷で F 4.9 μ g/dl, 8mg 負荷で 3.5 μ g/dl と正常の反応であり, 顕性 Cushing 病の診断基準は満たさなかった。また DDAVP 負荷試験でも ACTH の増加は認めなかった。しかし 23 時 F は 9.7 μ g/dl と日内変動は消失しており, 軽度のコルチゾール過剰分泌があると考えた。高コルチゾール血症の原因として Cushing 病や異所性 ACTH 産生腫瘍を疑い下垂体 MRI と胸腹部

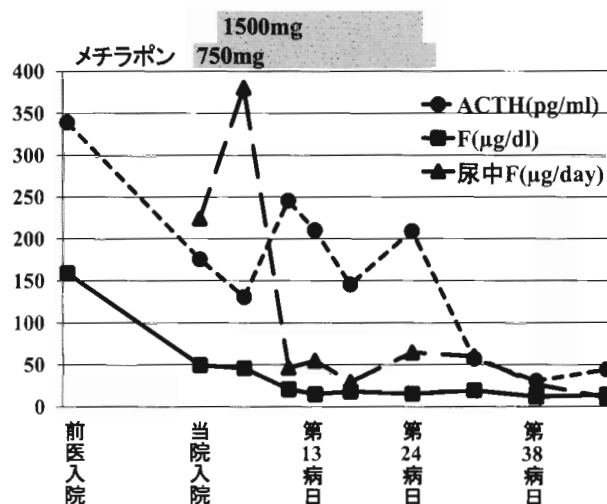


図 1 前医入院時からの血中 ACTH・F, 尿中 F の推移
メチラポン投与後より血中 F は低下傾向で, メチラポン中止後の第 38 病日にはいずれの項目も正常化した。

造影 CT を施行したが, 腫瘍を疑う所見を認めなかった。コルチゾールはほぼ正常化していることからさらなる精査は行わず経過観察することとした。

しかし CT で偶発的に左腸腰筋内に ϕ 2cm 程度のリング状に造影される腫瘍と右腸腰筋内に ϕ 1cm 弱の腫瘍を認め, 腰椎 MRI (図 2A) を施行し腸腰筋膿瘍と診断された。発熱や下肢挙上テストで疼痛を認めず, CRP 0.5mg/dl 以下と炎症所見がなかったことから外科的処置, 抗生剤投与は行わず経過観察とした。入院後 30 日目の MRI (図 2B) では炎症の縮小を認めた。

考察

本症例の高コルチゾール血症の原因として Cushing 病, 異所性 ACTH 産生腫瘍, 偽性 Cushing 症候群があげられ, また病態としてはコルチゾール分泌能が経過とともにほぼ正常化したことから周期性 Cushing 症候群が考えられる。偽性 Cushing 症候群

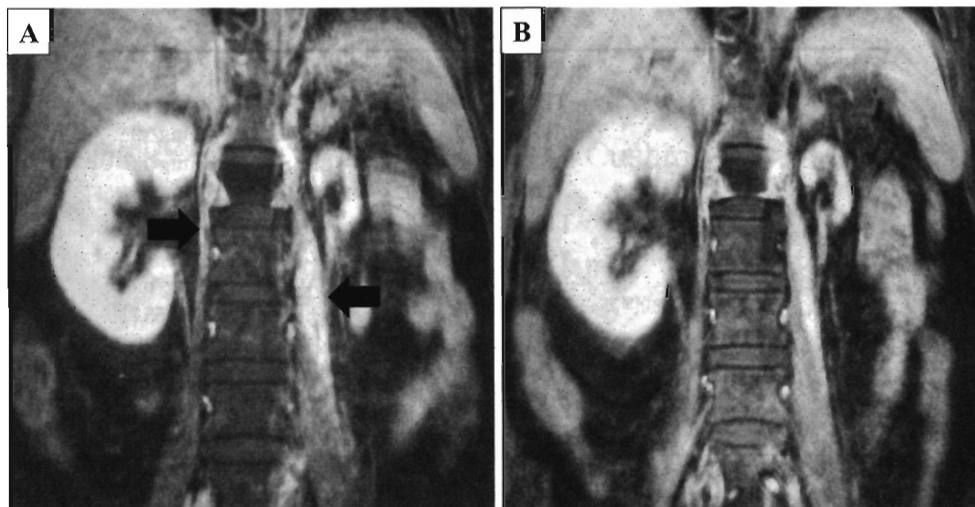


図2 腰椎 MRI

入院時 (A) は L1-5 レベルの左腸腰筋に炎症および L1-3 レベルに膿瘍形成と、L1-2 レベルの右腸腰筋に炎症を認める (矢印)。第 30 病日 (B) には炎症の縮小傾向を認める。

はアルコール依存やストレスなどが原因となり、本症例では病歴等から否定的であった。Cushing 病と異所性 ACTH 産生腫瘍の鑑別のため画像検査を行ったが診断にはいたらなかった。しかし画像検査での陽性率は Cushing 病で 40~60%⁹⁾、異所性 ACTH 産生腫瘍で 60% 前後²⁾と低く、完全には両疾患を否定することはできない。さらなる精査として FDG-PET、オクトレオチド受容体シンチグラフィ、下垂体静脈洞・海綿静脈洞サンプリングなどがあるが、前 2 者は保険適応とされていない。またサンプリングは現在コルチゾールがほぼ正常化していることから、偽陰性となる可能性が高いと考えた。

腸腰筋膿瘍は病因別に原発性と続発性に分類される⁵⁾。原発性は直接腸腰筋に炎症が波及する感染巣を近傍に認めないもので、潜在的な感染源から血行性、またはリンパ行性に炎症が波及し膿瘍を形成する。基礎疾患に糖尿病やステロイドの使用、低栄養状態などの易感染性状態が存在している場合が多い。一方続発性は隣接した領域の炎症性疾患から直接炎症が腸腰筋に波及し膿瘍を形成するもので、原因として消化器疾患、婦人科疾患、泌尿器疾患など多岐にわたる疾患があげられる。本症例では隣接した臓器に炎症性疾患を認めないことから原発性が考えられ、原因としては高コルチゾール血症とそれに伴う高血糖が考えられる。高コルチゾール血症では感染症を合併する率が高く、一般に血中 F 30 μ g/dl 以上

が持続すると敗血症のリスクが高まるといわれている。またコルチゾール過剰状態により発熱などの臨床症状がマスクされやすく、感染症が重症化するリスクともなる。感染症の原因としては細菌や真菌が多い¹⁾とされるが、本症例では診断時には発熱などなく血液培養等を施行したが原因菌は特定できなかった。

結 論

高コルチゾール血症に腸腰筋膿瘍を合併した症例を経験した。高コルチゾール血症では感染症に罹患するリスクが高いうえ、発熱などの臨床症状がマスクされやすいことから、Cushing 症候群の診療では全身の感染症を念頭に置いた検査・治療が重要であると考えられた。

文 献

- 1) 厚生労働科学研究費補助金難治性疾患克服研究事業「間脳下垂体機能障害に関する調査研究班」平成 18 年度総括・分担研究報告書, pp130-132 (2007)
- 2) Pacak K, Ilias I, Chen CC et al: The role of [(18) F] fluorodeoxyglucose positron emission tomography and [(111) In]-diethylenetriaminepentaacetate-D-Phe-pentetreotide scintigraphy in the localization of ectopic adrenocorticotropin-secreting tumors causing Cushing's syndrome. *J Clin Endocrinol Metab* **89**: 2214-2221, 2004
- 3) Walsh TR, Reilly JR, Hanley E et al: Changing etiology of iliopsoas abscess. *Am J Surg* **163**: 413-416, 1992
- 4) Fareau GG, Vassilopoulou-Sellin R: Hypercortisolemia and infection. *Infect Dis Clin North Am* **21**: 639-657, 2007