

## ムンプスに喉頭浮腫を合併した2症例

馬 淵 英 彰      平 野   隆      児 玉   悟  
能 美   希      岡 本 朋 代      鈴 木 正 志

大分大学医学部耳鼻咽喉科

### Two Cases of Mumps Virus Infection with Laryngeal Edema

Hideaki MABUCHI, M.D., Takashi HIRANO, M.D., Satosi KODAMA, M.D.,

Nozomi NOUMI, M.D., Tomoyo OKAMOTO, M.D., and Masashi SUZUKI, M.D., Ph.D.

Department of Otolaryngology, Head and Neck Surgery, The University of Oita Hospital, Oita

Mumps virus infection is a common disease and it leads to many complications. Laryngeal edema and severe complications are unusual thus we report two adult cases of laryngeal edema with mumps. Patients were a 41-year-old male and a 31-year-old male. In both cases, fiberscopic findings revealed marked edema of the epiglottic vallecula and arytenoid. These patients were admitted, investigated and treated in our hospital. In case1, CT scan showed pharyngeal laryngeal edema and swelling of both the submandibular and parotid glands. Laboratory examination indicated high WBC, CRP and serum amylase. In this case, we suspected infection, allergy and hereditary angioneurotic edema, that is why we started on a course of antibiotics and intravenous steroids. Despite this, his severe laryngeal edema persisted which warranted tracheostomy. His blood, sputum and urine cultures did not grow any bacteria. C1q inhibitor was negative. RAST was all negative. With these results, we eliminated the diagnosis of bacterial infections, hereditary angioneurotic edema and allergy. Swelling of the parotid glands and epididymitis were noted which made us suspect of mumps infection. His mumps titer was positive for immunoglobulin M (IgM) and G (IgG).

In case2, we diagnosed mumps infection by the familial history of mumps and epididymitis. The patient was started on intravenous steroids. His laryngeal edema improved and was discharged without undergoing a tracheostomy.

When we diagnose laryngeal edema, many otorhinolaryngologists suspect neck abscess or allergy as a principal differential diagnosis. This paper recommends that we must also suspect mumps infection as a cause of a laryngeal edema. In this case, it is important to establish an emergency airway treatment.

I. はじめに

ムンプスは、耳下腺の有病性腫脹と発熱を主症状とする疾患であり、耳下腺以外の腺組織、中枢神経系などにさまざまな合併症を引き起こす。報告は少ないが喉頭浮腫により呼吸困難を来す場合もある。今回我々はムンプスに合併した喉頭浮腫の2症例を経験したので報告する。

II. 症例

症例1：41歳男性

主訴：咽頭閉塞感、咀嚼痛

現病歴：2010年3月2日より両頸部腫脹を自覚。3月3日に咽頭閉塞感と咀嚼痛を認めたため近医内科受診した。抗菌薬処方されるも、3月4日に食事摂取困難となり、また咽頭閉塞感の増悪があり近医耳鼻科紹介され受診。喉頭浮腫の指摘あり、2010年3月5日当科紹介受診し、緊急入院となった

既往歴：ムンプスの既往、予防接種歴不明

家族歴：ムンプスの家族内発症なし

アレルギー歴：特記なし

入院時現症：血圧：116/76mmHg，脈拍：86/min，体温：36.5℃，SpO<sub>2</sub>：95% (room)

入院時所見：両耳下部から顎下部にかけての軽度腫脹と圧痛あり，喉頭内視鏡検査にて両側披裂部，喉頭蓋舌面の浮腫を認めた。(Fig. 1)

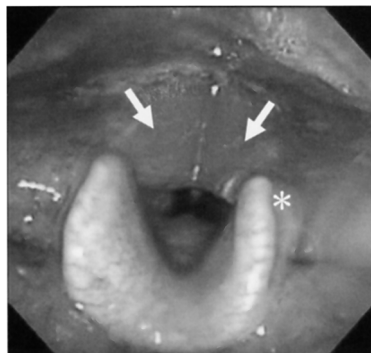


Fig. 1 Laryngeal fiberscopic findings (Case 1). Both arytenoid region (→) and epiglottis (\*) showed edematous.

血液検査所見：血清アミラーゼ 214IU/L，白血球 4750/μl，CRP 2.17mg/dl. RAST はすべて陰性。C1q inhibitor 陰性であり，アレルギー性疾患や遺伝性血管神経性浮腫は指摘できなかった。

入院時経過：入院時に喉頭浮腫が著明であったため，気管切開し，コハク酸ヒドロコルチゾンナトリウム 500mg/日を静脈投与した。深頸部膿瘍を考慮し，同時にスルバクタム/アンピシリン (SBT/ABPC) 3g/日，クリンダマイシン (CLDM) 1200mg/日を開始した。その後も，著明な喉頭浮腫の増悪を認め SBT/ABPC 6g/日へ増量した。3月8日，40度の発熱と CRP 13.2 と急激に炎症反応上昇を認めたため，緊急 CT 施行するも，咽頭粘膜の浮腫を認めるものの明らかな頸部リンパ節腫大と頸部膿瘍の所見は認めなかった。(Fig. 2) 3月9日，右精巣上体炎を発症したため，抗菌薬をパニペナム/ベタミプロン (PAPM/BP) 2g/日に変更した。ムンプスによる症

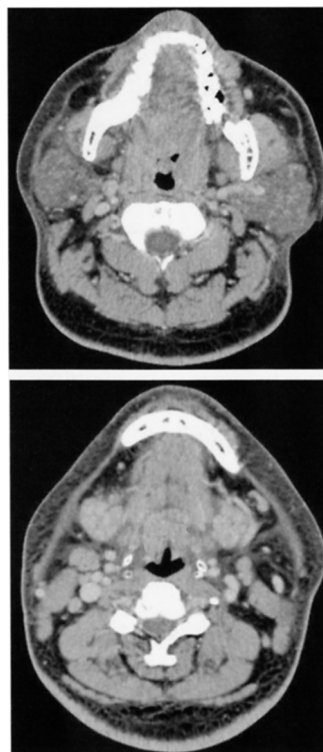


Fig. 2 Enhanced CT scan (case 1). CT scan revealed the pharyngolaryngeal edema and swelling of the submandibular and parotid glands

状も疑い、ムンプス抗体価を測定すると3月11日ムンプス IgM9.61 (C.O.I:1.21) と上昇認めためムンプス感染症との診断に至った。その後全身状態は徐々に改善し、3月19日退院となった。

症例2: 31歳 男性

主 訴: 咽頭痛, 発熱, 両側顎下部腫脹

現病歴: 2010年6月14日より咽頭痛が出現。

6月15日朝より40℃台の発熱, 両顎下部腫脹が出現。近医耳鼻科受診し, 喉頭浮腫を認め, コハク酸ヒドロコルチゾンナトリウム500mg静脈投与にても改善なく同日当科緊急入院となった。

家族歴: 子供2人(3歳, 6歳)が最近2週間以内にムンプスに罹患

既往歴: ムンプスの既往不明, 予防接種歴あり

アレルギー: なし

入院時現症: 血圧: 120/56mmHg, 脈拍: 78/min, 体温: 37.5℃, SpO<sub>2</sub>: 98% (room air 下)

入院時所見: 頸部触診上, 両顎下部腫脹と圧痛あり咽喉頭内視鏡所見上, 左披裂部の腫脹と発赤があり, 喉頭蓋舌面の腫脹も認めた。全身所見として, 両睾丸部腫脹と疼痛を認めた。

血液検査所見: 血清アミラーゼ754IU/L, 白血球10350/ $\mu$ l, CRP11.75mg/dl.

経過: 入院時, 喉頭浮腫が持続していたため, コハク酸ヒドロコルチゾンナトリウム500mgを

追加静脈投与した。血液学的検査上, 血清アミラーゼ高値であり, 睾丸部腫脹と疼痛, 顎下部腫脹を認めており, ムンプスの家族内発症を認めていたことよりムンプス感染に喉頭浮腫を合併しているものと診断した。その後経過診察のみとしたが, 喉頭浮腫は著明に改善し6月18日退院となった。退院後にムンプス IgM9.37 (C.O.I:1.21) と上昇ありムンプス感染症との診断となった。

### III. 考 察

ムンプス感染症の合併症として, 喉頭浮腫は報告が比較的少ない。本邦では詳細な記載を認める報告は自験例含め17例であった。(Table 1, Table 2)

初診時考えられた疾患としては, 深頸部膿瘍が最多で12例あり, そのうち頸部CTを施行されている症例を10例認めた。しかし, 頸部CTを撮影した症例全例についてムンプスに特異的な所見は認めなかった。遺伝性血管神経性浮腫を疑われた症例は2例, アレルギー性疾患が疑われた症例が1例であった。

ムンプス感染の確定診断は, ほとんどの症例でムンプス IgM 抗体 (EIA 法) の上昇により診断されていたが, IgM 抗体の上昇を認めなかった症例には, ペア血清による IgG 抗体 (EIA 法) 測定により確定診断されていた。血液・生化学検査所見にて, 全17例において喉頭浮腫発症時の炎症反応は平均 CRP1.78 (mg/dl), 平均白血球数6022 ( $\mu$ l) と比較的軽度であった。それに対し平均血清アミラーゼ605.3 (IU/l) と高値を示していた。このことより, 血清アミラーゼ高値がムンプス感染による喉頭浮腫症例の診断に補助として役立つのではないかと考えられる。

喉頭浮腫合併症例では, ステロイド投与が治療の中心である。本邦での報告17例において, 治療はステロイド投与のみが16例とほとんどであった。また, 症例1のようにステロイド投与にても喉頭浮腫の改善を認めない症例では気管切開を必要とする症例も少なからず認めており, 17

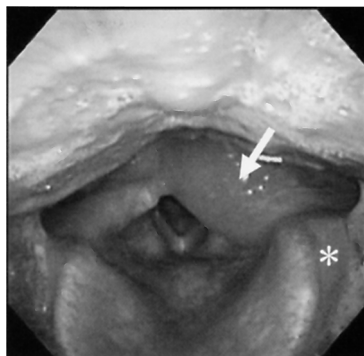


Fig. 3 Laryngeal fiberoscopic findings (Case 2). Left arytenoid region (→) and epiglottis (\*) showed edematous.

Table 1 Reported Cases of Mumps with Pharyngolaryngeal Edema in Japan

| 報告者                    | 報告年  | 年齢・性別                   | ムンプス以外の鑑別疾患             | 顎下部腫脹高度例        | 喉頭浮腫例        | 気管切開             |
|------------------------|------|-------------------------|-------------------------|-----------------|--------------|------------------|
| 殿内ら <sup>9)</sup>      | 2002 | ①47/M                   | 遺伝性血管神経性浮腫<br>深頭部腫瘍     | 左=右             | 両側           | Yes              |
| 加藤 <sup>4)</sup>       | 2002 | ②34/F<br>③32/F          | なし                      | 左=右<br>左=右      | 両側<br>両側     | Yes<br>No        |
| 木村ら <sup>1)</sup>      | 2005 | ④26/M<br>⑤36/F          | 深頭部腫瘍<br>同上             | 右<br>左          | 右<br>左       | No<br>No         |
| Ishida ら <sup>9)</sup> | 2006 | ⑥43/F<br>⑦36/F<br>⑧23/F | 深頭部腫瘍<br>同上<br>なし       | 左<br>左=右<br>左=右 | 左<br>左<br>両側 | No<br>Yes<br>Yes |
| 松田ら <sup>4)</sup>      | 2006 | ⑨33/F                   | 深頭部腫瘍                   | 左=右             | 両側           | No               |
| 岸部ら <sup>4)</sup>      | 2007 | ⑩23/F<br>⑪39/M          | なし<br>なし                | 左<br>不明         | 左<br>両側      | No<br>No         |
| 小林ら <sup>9)</sup>      | 2008 | ⑫23/F                   | 深頭部腫瘍                   | 左=右             | 両側           | No               |
| 山村ら <sup>4)</sup>      | 2009 | ⑬18/M                   | 深頭部腫瘍                   | 左               | 左            | No               |
| 山内ら <sup>4)</sup>      | 2009 | ⑭87/M                   | 深頭部腫瘍                   | 不明              | 両側           | No               |
| 佐々木 <sup>10)</sup>     | 2009 | ⑮30/M                   | 深頭部腫瘍                   | 右               | 右            | No               |
| 自験例                    | 2010 | ⑯45/M<br>⑰31/M          | 深頭部腫瘍<br>遺伝性浮腫<br>アレルギー | 左=右<br>左        | 両側<br>左      | Yes<br>No        |

Table 2 Reported Cases of Mumps with Pharyngolaryngeal Edema in Japan

| 症例  | WBC (/μl) | CRP (mg/dl) | AMY (iul) | ムンプス抗体 (EIA)   | CT 所見 (喉頭浮腫以外)            | 治療  |
|-----|-----------|-------------|-----------|----------------|---------------------------|---|
| 症例① | 詳細不明      | 詳細不明        | 970       | IgM(-), IgG(+) | 腫瘍 (-)                    | コハク酸とドコロルチゾン<br>ナトリウム 300m g/day,<br>2days      |
| 症例② | 3000      | 0.3         | 489       | IgM(+)         | 両耳下腺・顎下<br>腺腫脹、膿瘍<br>(-)  | コハク酸とドコロルチゾン<br>ナトリウム 200m g/day,<br>2days      |
| 症例③ | 4300      | 1.6         | 873       | IgM(-)         | -                         | 同上, 3days                                       |
| 症例④ | 6900      | 0.47        | 786       | IgM(+), IgG(+) | 両耳下腺・顎下<br>腺腫脹、膿瘍<br>(-)  | コハク酸とドコロルチゾン<br>ナトリウム 1000m g/day,<br>1days     |
| 症例⑤ | 6800      | 0.32        | 556       | IgM(+), IgG(+) | 両耳下腺・顎下<br>腺腫脹、膿瘍<br>(-)  | コハク酸とドコロルチゾン<br>ナトリウム 300m g/day,<br>2days      |
| 症例⑥ | 7800      | 0.4         | 482       | IgM(+)         | 両耳下腺・顎下<br>腺腫脹、膿瘍<br>(-)  | デキサメタゾン(詳細不明)                                   |
| 症例⑦ | 4300      | 0.5         | 119       | IgM(+)         | 両耳下腺・顎下<br>腺腫脹、膿瘍<br>(-)  | 同上  |
| 症例⑧ | 3360      | 0.2         | 668       | IgM(+)         | -                         | 同上  |
| 症例⑨ | 9500      | 0.3         | 1194      | IgM(+)         | -                         | コハク酸とプレドニゾン<br>ナトリウム<br>500mg/day, 2days        |
| 症例⑩ | 詳細不明      | 詳細不明        | 詳細不明      | IgM(+)         | -                         | コハク酸とプレドニゾンナ<br>トリウム 80mg/day, 3days            |
| 症例⑪ | 同上        | 同上          | 同上        | IgM(+)         | -                         | 同上, 1days                                       |
| 症例⑫ | 3300      | 1.2         | 1177      | IgM(+), IgG(+) | 両耳下腺・顎下<br>腺腫脹、膿瘍<br>(-)  | コハク酸とドコロルチゾン<br>ナトリウム 700m g/day 以<br>り漸減 4days |
| 症例⑬ | 8060      | 0.03        | 145       | IgM(+)         | -                         | コハク酸とプレドニゾンナ<br>トリウム 20mg/day, 2days            |
| 症例⑭ | 6800      | 0.74        | 121       | IgM(+), IgG(+) | 右耳下腺腫<br>脹、耳下腺内<br>膿瘍 (+) | コハク酸とドコロルチゾン<br>ナトリウム 300m g/day,<br>1days      |
| 症例⑮ | 5100      | 3.44        | 562       | IgM(+), IgG(+) | 右耳下腺・顎下<br>腺腫脹、膿瘍<br>(-)  | 不明  |
| 症例⑯ | 4750      | 2.17        | 214       | IgM(+), IgG(+) | 両耳下腺・顎下<br>腺腫脹、膿瘍<br>(-)  | コハク酸とドコロルチゾン<br>ナトリウム 500m g/day,<br>1days      |
| 症例⑰ | 10350     | 11.75       | 754       | IgM(+), IgG(+) | -                         | コハク酸とドコロルチゾン<br>ナトリウム 1000m g/day,<br>1days     |

例中5例に認めている。しかし、症例2では初診時よりのステロイド投与にて気管切開を回避し喉頭浮腫の著明な改善を認めることができた。

ステロイドの初回投与量について、プレドニン換算で全例平均 122.5mg/day であった。しかし、気管切開例と非気管切開例で違いを認めており、気管切開例で平均 58.3mg/day, 非気管切開例で平均 141.75mg/day であった。このことは、初回ステロイド投与量が重要であり、喉頭浮腫の重症化を防ぐのにステロイドの多量投与が有効である

可能性が示唆された。

ムンプスウイルス感染症に合併する喉頭浮腫の原因として、木村ら<sup>1)</sup>は、顎下線腫脹が著明な側に喉頭浮腫が顕著であることから、顎下線とその周囲軟部組織の炎症性浮腫により二次的に咽喉頭から流出するリンパ管が閉塞し循環障害をきたし、咽喉頭粘膜に浮腫を来たしたと推察している。本症例を含めた17例中顎下部の腫脹が高度であった15例ほぼ全例についても、腫脹高度側に一致した喉頭浮腫を来たしており、顎下腺とその周囲軟部組織の炎症性浮腫による循環障害により、咽喉頭粘膜に浮腫を来たしたものと推測された。

IV. まとめ

今回われわれは、ムンプスに喉頭浮腫を合併した2症例を報告した。本症例のように、喉頭浮腫症例において、CT上頸部膿瘍像を認めず、血中アミラーゼ高値を認めた場合、ムンプス感染症も鑑別診断として考える必要がある。

参考文献

- 1) 木村美和子, 千原康裕, 二藤隆春, 他: 咽喉頭浮腫を合併したムンプスの2症例. 日気管食道会報 57: 37~39, 2002.
- 2) Ishida M, Fushiki H, Morijiri M, et al.: Mumps virus infection in adult: three cases of supraglottic edema. Laryngoscope 116: 2221~2223, 2006.
- 3) 殿内一弘, 山本昌彦, 吉田友英, 他: 喉頭浮腫を合併したムンプス例, 耳鼻臨床 95: 951~955, 2002.
- 4) 加藤洋治: 流行性耳下腺炎に合併した喉頭浮腫の成人2例. 日気管食道会報 53: 37~39, 2002.
- 5) 松田和徳, 川渕 崇, 堀 洋二, 武田和也: 咽喉頭浮腫を合併したムンプスの妊婦1症例. 徳島県立中央病院医学雑誌 28: 85~90, 2007.
- 6) 岸部 幹, 荒川卓哉, 畑山尚生, 原渕保明:

- 流行性耳下腺炎に伴う喉頭浮腫の2例. 日気食会報 58: 262 ~ 263, 2007.
- 7) 小林俊樹, 平澤良征, 宇田川友克, 他: 喉頭浮腫を合併したムンプス感染症の1症例. 耳鼻展望 51: 49 ~ 51, 2008.
- 8) 山村一彦: ムンプスに伴う喉頭浮腫例. 耳鼻臨床 102: 12: 1061 ~ 1064, 2009.
- 9) 山内智彦, 市村恵一: 87歳で流行性耳下腺炎に罹患し耳下腺内膿瘍と喉頭浮腫を合併した1例. 耳喉頭頸 82: 235 ~ 237, 2010.
- 10) 佐々木 徹: 喉頭浮腫を合併したムンプスの1症例. 日本耳鼻咽喉科学会会報 112: 290, 2009.

連絡先: 馬淵英彰

〒 879-5593

大分県由布市挾間町医大ヶ丘1丁目1番地

大分大学医学部付属病院 免疫アレルギー統御講座 (耳鼻咽喉科)

TEL 097-586-5913 FAX 097-549-0762