

症例報告

直腸潰瘍感染から骨盤・Batson 静脈叢を介した
B 群連鎖球菌による椎体周囲感染と髄膜炎の 1 例

堤 涼介 齋藤 正明 吉澤 利弘*

要旨：症例は 62 歳男性である。コントロール不良の糖尿病と頑固な便秘あり。入院時、意識障害、発熱、項部硬直、多形核球優位の髄液細胞数増多、糖低下から細菌性髄膜炎と診断した。画像検査で脊椎硬膜外膿瘍・傍脊柱筋膿瘍・脊椎炎も判明し、筋膿瘍穿刺液から B 群連鎖球菌の *Streptococcus agalactiae* を検出した。感染は抗生剤による保存的治療でいずれも軽快した。経過中、突然の大量下血を契機に便秘にともなう直腸宿便潰瘍の合併が明らかとなったことから、直腸常在菌の B 群連鎖球菌が、直腸潰瘍を感染の起点として骨盤静脈叢に入り、硬膜外腔や椎体、傍脊柱筋に分布する Batson 静脈叢を介して一連の感染を惹起したと推定した。

(臨床神経 2011;51:493-498)

Key words：B群連鎖球菌, *Streptococcus agalactiae*, 硬膜外膿瘍, 直腸潰瘍, Batson 静脈叢

はじめに

脊椎硬膜外膿瘍は比較的古い疾患であるが、診断や治療が困難なばいがあり、致死的になることもある重要な疾患である。起原菌としては黄色ブドウ球菌の頻度が高いが、今回われわれは、起原菌としてはまれな B 群連鎖球菌により髄膜炎とともに脊椎硬膜外膿瘍・傍脊柱筋膿瘍・脊椎炎を併発した一例を経験した。本例には基礎にコントロール不良の糖尿病があり、便秘にともなう直腸潰瘍を合併していた。B 群連鎖球菌は腸管の常在菌であり、骨盤静脈叢が硬膜外腔や椎体、傍脊柱筋に分布する Batson 静脈叢と交通があることから、直腸潰瘍が今回の感染経路の起点となった可能性が考えられる。本稿では既報告例を参照しつつ、感染経路としての静脈叢の重要性について議論する。

症 例

患者：62 歳、男性

主訴：発熱、意識障害

既往歴：糖尿病。

現病歴：2009 年 9 月に視力低下で当院眼科を受診し、硝子体出血、糖尿病性網膜症の所見から、高血圧、糖尿病(ヘモグロビン A1c 10.5%)の存在が明らかになった。これらに対して当院内科で内服加療が開始されたが、以前よりみとめていた頑固な便秘が緩下剤投与にもかかわらず悪化した。11 月末には腰痛を自覚。明らかな頭痛はなかった。12 月初めより傾眠

傾向、食思不振が出現。その 4 日後に硝子体出血の手術目的に当院眼科へ入院したが、入院時に発熱、意識障害、項部硬直をみとめたため手術は中止となり、当科へ転科となった。

入院時一般身体所見：身長 160.1cm、体重 63.4kg、体温 38.8℃、血圧 148/79mmHg、脈拍 113/分と発熱、高血圧、頰脈をみとめた。

入院時神経学的所見：意識レベルは JCS II-10 と低下し、項部硬直、ケルニッヒ徴候がともに陽性であった。脳神経系には明らかな異常なし。運動系では下肢近位に徒手筋力テストで 4 レベルの筋力低下あり。感覚系では両下肢に振動覚低下をみとめた。両側アキレス腱反射は低下していたが、病的反射はみとめなかった。小脳系には明らかな異常はなく、自律神経系では高度の便秘をみとめた。

入院時検査所見：血算では白血球数 18,700/ μ l、赤血球数 346 万/ μ l、ヘモグロビン 9.8g/dl。赤血球沈降速度は 110mm/hr 以上、C 反応性蛋白は 21.4mg/dl と炎症反応が陽性であった。随時血糖 344mg/dl、ヘモグロビン A_{1c} 8.4% と糖尿病の所見あり、尿蛋白 3+、尿糖 4+であった。入院時に施行した便潜血検査は陽性であった。入院当日に施行した髄液検査では、初圧 80mmH₂O、細胞数 165,270/ μ l (多形核球 98.5%)、蛋白 2,021mg/dl と高値で、糖は 77mg/dl と血糖に比較して低下していた。髄液の塗抹・培養検査ならびに血液・尿の培養検査ではいずれも細菌は検出されなかった。脳 CT および脳 MRI では特記所見なし。心電図では CV_{RR} が 0.95% と低下し、末梢神経伝導検査にて下肢運動神経と上下肢感覚神経において誘発電位の振幅の減少をみとめ、糖尿病性ニューロパチーによる軸索障害の所見と考えた。

*Corresponding author: NTT 東日本関東病院神経内科 [〒141-8625 東京都品川区東五反田 5-9-22]

NTT 東日本関東病院神経内科

(受付日：2011 年 2 月 6 日)

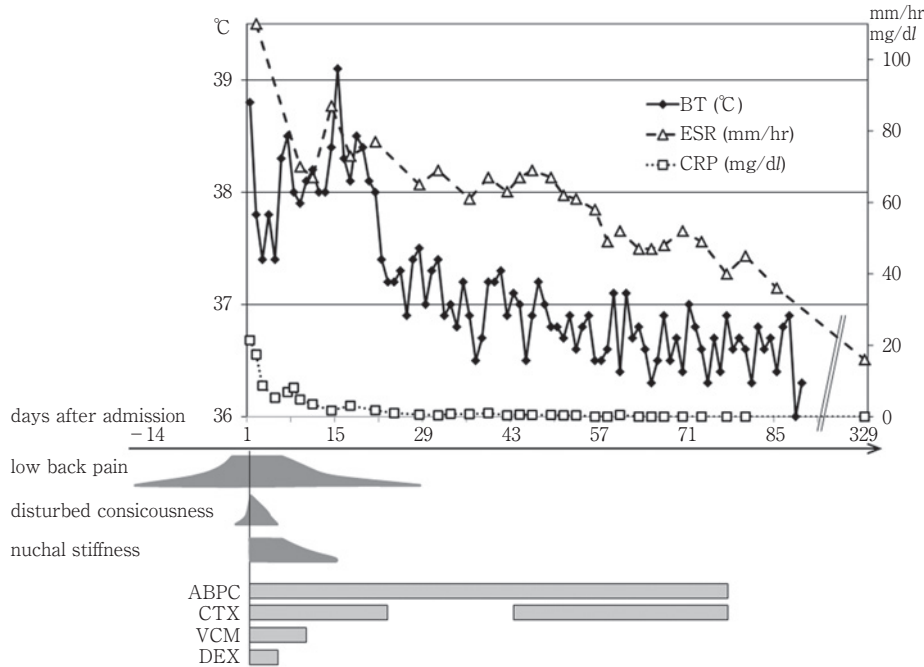


Fig. 1 Clinical course.

BT; body temperature, ESR; erythrocyte sedimentation rate, CRP; C-reactive protein, ABPC; aminobenzylpenicillin, CTX; cefotaxime, VCM; vancomycin, DEX; dexamethasone

入院後経過 (Fig. 1) : 発熱, 意識障害, 項部硬直があり, 髄液検査にて細胞数増多, 糖低下をみとめたため細菌性髄膜炎と診断し, アンピシリン, セフォタキシム, 塩酸バンコマイシンによる治療を開始. 当初はステロイドの併用もおこなった. 38°C 台の発熱は持続していたが, 意識障害はすみやかに改善し, 項部硬直, 炎症反応も数日で徐々に改善がみられた. ところが, 入院1週間後に突然, 大量下血をきたし, 緊急の腹部造影CT検査にて直腸壁からの造影剤の漏出をみとめた (Fig. 2a). ひき続き緊急で下部消化管内視鏡検査を施行したところ, 全周性の直腸潰瘍と同部からの出血が観察された (Fig. 2b). 潰瘍部の病理検査では悪性所見はみとめず, 大量の硬い便塊をみとめたことから, 宿便による直腸潰瘍と診断した. さらに腹部造影CT検査において, 第4腰椎~仙骨部にかけての左傍脊柱筋にリング状の造影効果のみとめる病変を複数みとめたことから (Fig. 3a) 膿瘍の存在をうたがいを穿孔を施行. えられた膿の細菌検査にてB群連鎖球菌に属する *Streptococcus agalactiae* が検出されたことから, 同菌を起炎菌とする傍脊柱筋膿瘍と診断した. 腰椎MRIでは, 腰椎下部から仙骨部にかけて多発性傍脊柱筋膿瘍に加え, 第5腰椎付近の腹側左側に硬膜外膿瘍をみとめた (Fig. 3b, c). さらに頸椎MRIでは, 第4・5頸椎の脊椎炎の所見あり (Fig. 4a). ガリウムシンチグラフィでは, 頸椎と腰部傍脊柱筋に高集積をみとめた (Fig. 4b). 頭蓋内, 胸椎には病変は観察されなかった. 複数箇所が生じた感染はいずれも *Streptococcus agalactiae* を起炎菌とするものと考え, アンピシリンとセフォタキシムによる治療を継続し, 治療開始3週間後には解熱がえられた. な

お, 入院2週間前より腰痛がみられていたとのことであったが, 治療により症状が改善したことから, 硬膜外膿瘍や傍脊柱筋膿瘍による症状であったと考えた. 計12週間の抗生剤点滴治療により, 画像所見と炎症反応は軽快し, 治療後の腰椎MRI (Fig. 3d), ガリウムシンチグラフィ (Fig. 4c) でも病変は消失した.

考 察

脊椎硬膜外膿瘍は, 糖尿病や免疫抑制状態などの易感染性を背景に硬膜外腔に膿瘍を形成するもので, 診断・治療が遅れると重篤な神経学的後遺症を残し, 致死的になる重要な疾患である. 脊椎麻酔や薬物注射などを契機にひきおこされることもあるが, 敗血症にともない生ずることもある. 起炎菌としては黄色ブドウ球菌の頻度が高くなる (50~66%), 治療は抗生剤に加えて難治性のばあいには手術を要することもあると報告されている¹⁾.

本症例で傍脊柱筋膿瘍から同定されたB群連鎖球菌は陰や直腸の常在菌であり, 妊婦から新生児への感染予防の観点から重要であることが従来より知られている. 一方, 近年高齢者においてB群連鎖球菌の保菌率は25%におよぶとする報告があり, さらにB群連鎖球菌による感染症を発症した患者の40%は保菌者からの発症であったとされている²⁾. とくに高齢者では尿路感染症の頻度が高く, 糖尿病, 悪性腫瘍, 心疾患, 消化管疾患, 皮膚疾患などが危険因子として挙げられている. またB群連鎖球菌による脊椎炎も報告されており, 糖尿

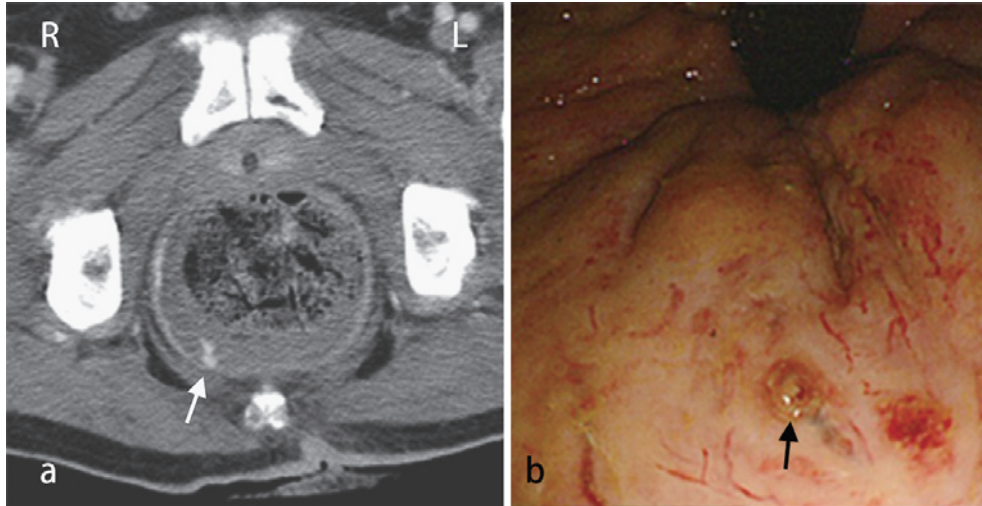


Fig. 2 Rectal ulcer demonstrated by CT and colonoscopy.

(a) A contrast-enhanced CT scan demonstrates a leakage of the contrast medium through the rectal wall (white arrow).

(b) A hemorrhagic rectal ulcer is observed by the colonoscopy (black arrow).

R; right, L; left

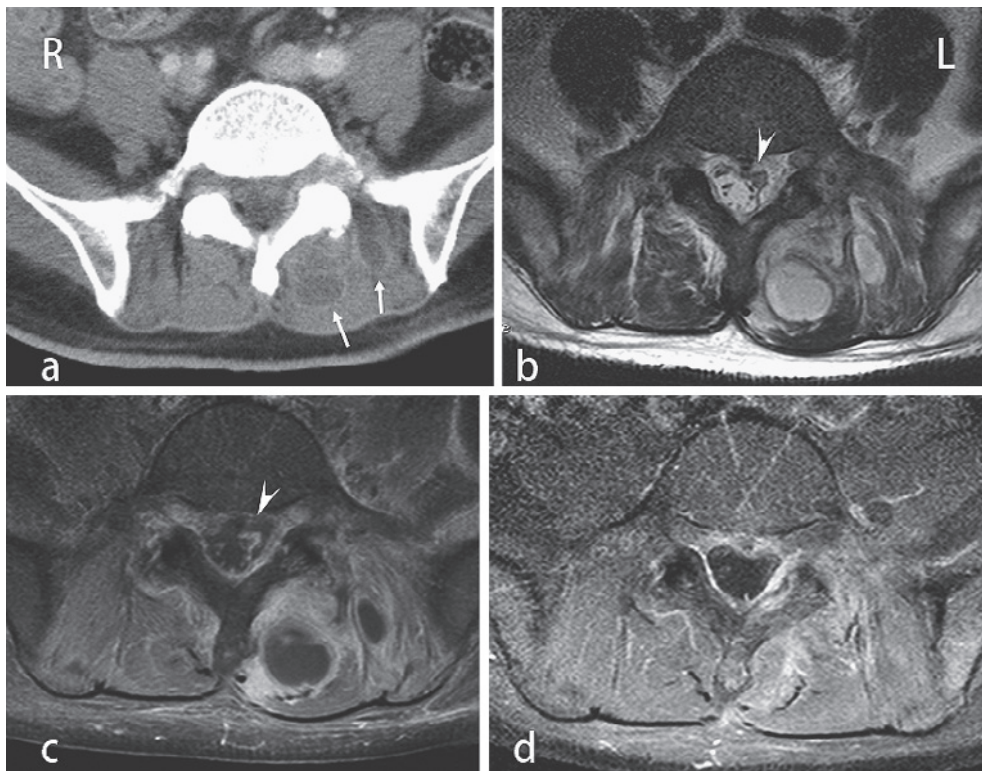


Fig. 3 CT and MRI of the lumbar and sacral area before (a-c) and after (d) treatment.

(a) A contrast-enhanced CT scan at L5 level shows multiple ring enhancements (white arrows).

(b) T₂ weighted image (Axial, 1.5T; TR 2,515ms, TE 110ms) and (c) gadolinium-enhanced T₁ weighted image (Axial, 1.5T; TR 664ms, TE 9ms) at L5 level. An arrowhead indicates an epidural abscess.

(d) Gadolinium-enhanced T₁ weighted image at L5 level after treatment (Axial, 1.5T; TR 505ms, TE 8ms).

R; right, L; left

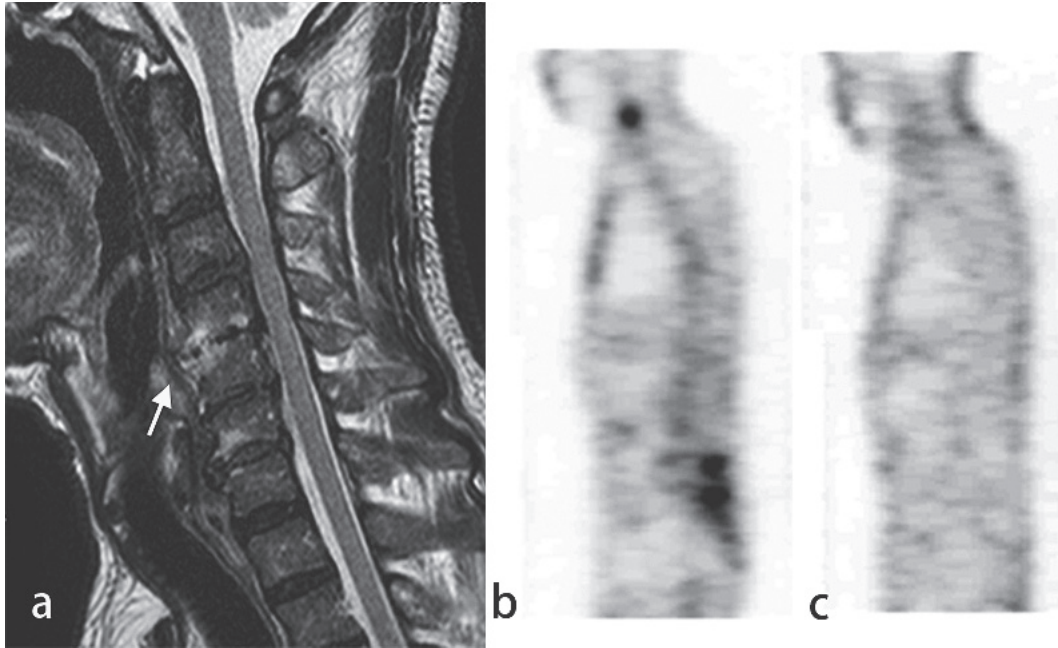


Fig. 4 Cervical MRI (a) and ^{67}Ga -citrate scintigraphy before (b) and after (c) treatment.
 (a) Cervical spondylitis (arrow) demonstrated by T₂ weighted image (Sagittal, 1.5T; TR 2,500ms, TE 100ms).
 (b) Highly uptake areas at cervical spondylitis and lumbar paraspinal muscle abscess on the sagittal image of Ga scintigraphy.
 (c) Ga uptake decreased after treatment.

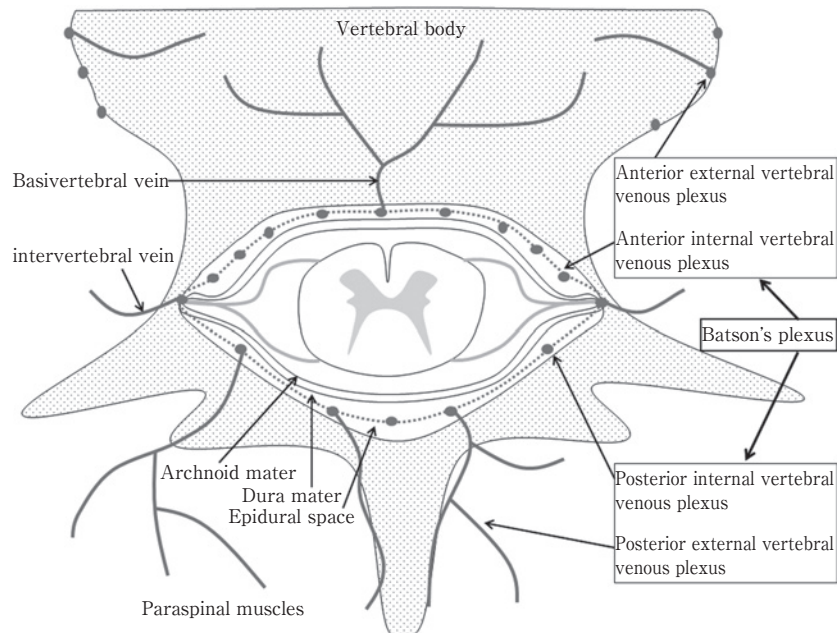


Fig. 5 Anatomy of the spinal venous system.

Batson's plexus consists of internal vertebral venous plexus in the epidural space and external vertebral venous plexus in the epidural space. The external vertebral venous plexus contributes to the venous return from vertebral bones and paraspinal muscles.

病や悪性腫瘍を基礎疾患として50%の例で血液培養が陽性であったとされている³⁾。これに対して、B群連鎖球菌による硬膜外膿瘍の報告はまれで^{6)~10)}、脊椎麻酔や外傷など外部からの感染経路が想定されるもの以外では、尿路感染症との合併例⁴⁾⁵⁾が報告されている以外、感染経路が不明なものが多い。

本症例においてB群連鎖球菌が起因菌となって硬膜外膿瘍、傍脊柱筋膿瘍、椎体炎、髄膜炎など広範な感染症をひきおこした理由として、糖尿病の自律神経障害にともなう宿便により物理的な刺激や局所の虚血を契機に生じた直腸潰瘍の関与を推定した。直腸には直腸静脈叢があり、他の骨盤内臓器からの静脈叢と合流して骨盤静脈叢を形成する。骨盤静脈叢はさらに硬膜外腔にある内椎骨静脈叢および椎体周囲や傍脊柱筋に分布する外椎骨静脈叢の両者からなるBatson静脈叢と交通している(Fig. 5)。このBatson静脈叢は壁が薄く弁がないという解剖学的な特徴を有し、結果として腹圧など通常の生理的な変化でも容易に静脈血が骨盤静脈叢からBatson静脈叢を介して椎体周囲や硬膜外を上行性に逆流する可能性が指摘されている¹¹⁾。

この静脈叢の逆流については、元来は1930年代にBatsonが前立腺癌の骨転移の経路を説明するために考え、実際に証明したものである¹²⁾。その際にBatsonは感染の播種経路としての可能性についても言及していた。Batson静脈叢と椎体炎・硬膜外膿瘍といった感染症とのかわりに関しては、Henriquesらが前立腺をふくむ下部尿路疾患の術後感染症と脊椎炎との関連を示したことに始まる¹³⁾。その後、鳥らは宿便潰瘍にともなう直腸穿通により骨盤内膿瘍と脊椎硬膜外膿瘍を併発した症例を報告しており、本例との類似が注目される¹⁴⁾。鳥らの例では起因菌は同定されていないが、感染の播種経路としてBatson静脈叢の関与を考察している。

本症例においては、①直腸の常在菌であるB群連鎖球菌に属する*Streptococcus agalactiae*が起因菌となり椎体周囲の感染をひきおこしたこと、②糖尿病の自律神経障害による頑固な便秘により直腸に宿便潰瘍を生じていたこと、③慢性的な便秘で腹圧がかかりやすい状態が常にあったこと、④明らかな感染が存在した入院時の採血でも菌血症をきたしていなかったこと、以上が特徴としてあげられる。これらの点を考慮すると、本例におけるB群連鎖球菌の感染は、直腸潰瘍を起点として骨盤静脈叢から逆行性にBatson静脈叢を介し伝播していった可能性が考えられる。本例で当初みられた髄膜炎に関しては、入院時すでに便潜血陽性で直腸潰瘍が存在していたと思われること、また入院の2週間前から腰痛を発症しておりこの時点ですでに硬膜外膿瘍や傍脊柱筋膿瘍をきたしていた可能性が高いと思われることから、硬膜外膿瘍と同じB群連鎖球菌の椎体周囲感染巣からの二次的波及で生じたものと考えた。

B群連鎖球菌による椎体周囲の感染症はまれであるが、このような症例に遭遇したばあいには、その背景として下部消化管疾患が存在し、そこからの感染が静脈叢を介して広がった可能性を念頭に、下部消化管の検索をおこなう必要がある

と考え報告した。

本論文の要旨は第192回日本神経学会関東地方会(2010年3月、東京)で発表した。

文 献

- 1) Pradilla G, Ardila GP, Hsu W, et al. Epidural abscesses of the CNS. *Lancet Neurol* 2009;8:292-300.
- 2) Edwards MS, Baker CJ. Group B streptococcal infections in elderly adults. *Clin Infect Dis* 2005;41:839-847.
- 3) Solis-Garcia del Pozo J, Martinez-Alfaro E, Abad L, et al. Vertebral osteomyelitis caused by *Streptococcus agalactiae*. *J Infect* 2000;41:84-90.
- 4) Bauer TM, Pippert H, Zimmerli W. Vertebral osteomyelitis caused by group B streptococci (*Streptococcus agalactiae*) secondary to urinary tract infection. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis* 1997;16:244-246.
- 5) Keitua Yáñez I, RuaGalisteo O, López Rodríguez A, et al. Espondilitis, absceso epidural, meningitis y endoftalmitis por *Streptococcus agalactiae*. *Med Intensiva* 2007;31:157-158.
- 6) Meis JF, Kullberg BJ, Kremer HP, et al. Cervical spinal epidural abscess due to group B streptococcus in a previously healthy elderly male. *Scand J Infect Dis* 2000;32:577.
- 7) Lee SY, Chee SP. Group B *Streptococcus* endogenous endophthalmitis: case reports and review of the literature. *Ophthalmology* 2002;109:1879-1886.
- 8) Chung SY, Chen CH, Yu WL. Spinal epidural abscess caused by group B *Streptococcus* in a diabetic woman presenting with febrile low back pain. *Jpn J Infect Dis* 2005;58:177-179.
- 9) Okada F, Takayama H, Doita M, et al. Lumbar facet joint infection associated with epidural and paraspinal abscess: a case report with review of the literature. *J Spinal Disord Tech* 2005;18:458-461.
- 10) Fukushima K, Fushimi T, Yamamoto K, et al. Spinal epidural abscess with osteomyelitis as a cause of bacterial meningitis. *Intern Med* 2008;47:883.
- 11) Groen RJ, Groenewegen HJ, van Alphen HA, et al. Morphology of the human internal vertebral venous plexus: a cadaver study after intravenous Araldite CY 221 injection. *Anat Rec* 1997;249:285-294.
- 12) Batson OV. The function of the vertebral veins and their role in the spread of metastases. *Ann Surg* 1940;112:138-149.
- 13) Henriques CQ. Osteomyelitis as a complication in urology; with special reference to the paravertebral venous plexus. *Br J Surg* 1958;46:19-28.
- 14) 鳥 宏彰, 江副英理, 奈良 理ら. 直腸穿通により骨盤内膿瘍および脊椎硬膜外膿瘍を来した1例. *日消外会誌* 2007;40:665-670.

Abstract**Group B streptococcus meningitis and infection surrounding the spinal canal caused by bacterial transmission from rectal ulcer via Batson's plexus**

Ryosuke Tsutsumi, M.D., Masaaki Saito, M.D., Ph.D. and Toshihiro Yoshizawa, M.D., Ph.D.
Department of Neurology, Kanto Medical Center NTT EC

A 62-year-old man was admitted to our hospital because of fever and disturbed consciousness. He suffered from persistent constipation due to diabetic autonomic neuropathy. On admission, neck stiffness and weakness of the lower extremities were observed. Cerebrospinal fluid (CSF) pleocytosis and decreased CSF glucose concentration showed the presence of meningitis. Bacterial culture of CSF was negative. One week after admission, he suddenly suffered from massive bleeding from the rectum, where a hemorrhagic ulcer caused by severe persistent constipation was observed. Contrast-enhanced CT scans and gadolinium-enhanced MR scans demonstrated a lumbar spinal epidural abscess, paraspinal muscle abscess, and cervical osteomyelitis. *Streptococcus agalactiae*, a bacterial species belonging to the group B streptococci, was isolated from pus obtained by needle puncture of the paraspinal muscle abscess. His entire condition was treated successfully with ampicillin and cefotaxime. Group B streptococci normally colonize the mucous membrane of the genital or lower gastrointestinal regions and rarely cause a spinal epidural abscess. However, in this case, the existence of a rectal ulcer probably made it possible for *S. agalactiae* to cause an infection of the epidural space or paraspinal muscles via the spinal valveless venous system named Batson's plexus communicating with the sacral, pelvic, and prostatic venous plexus. Our case indicated the importance of Batson's plexus in group B streptococcus infections surrounding the spinal canal and the necessity to explore for intrapelvic lesions including a rectal ulcer.

(Clin Neurol 2011;51:493-498)

Key words: Group B Streptococcus, *Streptococcus agalactiae*, epidural abscess, rectal ulcer, Batson's plexus
