

中文題目：急性膽管炎及肺炎併發敗血性休克在一位患有 C 型肝炎及原發性膽道肝硬化的五十四歲女性：罕見的類鼻疽臨床表現

英文題目： Acute cholangitis and pneumonia with septic shock in a 54-year-old female with underlying primary biliary cirrhosis and hepatitis C infection: a rare presentation of melioidosis

作者：賴重旭，林錫勳，黃俊凱，秦淳，吳淑萍\*，許資敏\*，洪千媚\*

服務單位：義大醫院感染科，義大醫院感染控制科\*

### 前言：

類鼻疽(Melioidosis)是一種由類鼻疽伯克氏菌(*Burkholderia pseudomallei*)感染所引起的疾病，主要流行於南北緯 20 度之間的熱帶地區，尤其在東南亞地區的泰國東北部和澳洲北部。台灣位處於東南亞，具有適合 *B. pseudomallei* 生長的環境。台灣的第一例類鼻疽病例被報告於西元 1985 年，此後，境外移入及台灣本土的病例報告逐漸增加。在台灣類鼻疽儼然成爲一種新興及地方流行的疾病。我們在此報告一例罕見以急性膽管炎及菌血性肺炎合併敗血性休克表現的類鼻疽病例。

### 病例報告：

一位居住於南台灣的五十四歲女性，從住院前 6 天開始出現發燒合併寒顫的症狀。發燒後三天開始出現黃疸及右上腹疼痛，且此疼痛會牽連到後背及右肩處。她否認有咳嗽，呼吸不適，腹瀉或者小便疼痛等症狀。診所醫師懷疑病患有急性膽囊炎並將病患轉診至義大醫院急診室。在急診室經檢查後，患於是以急性膽管炎以及肺炎合併敗血性休克的診斷收住院。影像學方面：CXR 顯示在右上肺有肺炎變化(圖一 A)，腹部電腦斷層顯示有膽結石但沒有膽囊炎的變化，有輕微的總膽管及總肝管擴大以及肝脾腫大 (圖一 B)。此外，並沒有發現肝臟或脾臟的膿瘍或者其他腹腔內的病灶。起初，以靜脈給予 amoxicillin/clavulanate 1.2 g q8h 的經驗性抗生素治療，後來改爲 ceftriaxone 1 g q12h 和 metronidazole 500 mg q8h。隔日安排 ERCP 檢查發現總膽管及總肝管擴大有輕微的擴大，有膽結石，但是沒有明顯的膽管結石或病灶 (圖一 C)。血液培養初步報告有長出革蘭氏陰性桿菌，其有具特色的雙極性色，狀似安全別針 (圖二 A)。其菌落呈現具特色的中心凹陷及周圍有放射樣邊緣的外觀 (圖二 B)。此菌後來鑑定出是 *Burkholderia pseudomallei*，其對 amoxicillin/clavulanate，ceftazidime，cefepime，imipenem 和 ciprofloxacin 具感受性；對 gentamicin 和 amikacin 具抗藥性。於是病患被診斷爲類鼻疽，並改以抗生素 ceftazidime 2 g q8h 和 ciprofloxacin 400mg q12h 治療。經治療後，病患退燒且血壓，腎功能及黃膽指數也恢逐漸復正常。

我們也採集病患的血液作勾端螺旋體(*Leptospirosis*)的檢驗，其兩次結果皆呈現陰性。病患在接受 14 天的靜脈 ceftazidime 和 ciprofloxacin 治療後出院，並每日持續口服 trimethoprim/sulfamethoxazole 及 doxycycline 治療。於門診追蹤時，病患另外被檢查出有 C 型肝炎帶原以及原發性膽道肝硬化 (anti-mitochondrial 抗體 titer 1:320)。我們曾建議病患作膽囊切除術，但是病患仍猶豫不決。結至完稿，病患經持續口服抗生素治療及追蹤兩個月，並無類鼻疽復發的情形。

## 討論：

近十年內，台灣本土的類鼻疽病例報告逐漸增加。在一利用抗 flagellin 抗體在台灣做 *B. pseudomallei* 感染血清盛行率的調查中發現，台灣人中的隱性的感染率為 2.8-5%。在南台灣高雄地區糖尿病病患中，血清陽性率為 3.0%。因此，類鼻疽在台灣已成為一種新興以及地方流行的疾病。此病患否認曾經有過出國旅遊，因此這是一例台灣本土病例。類鼻疽於腹腔內的感染以肝和脾臟膿瘍為主要的表現。不過，回顧文獻上並沒有類鼻疽以急性膽管炎表現的病例，此應為第一例病例報告。膽結石的存在應該導致此病患發生急性膽管炎主要的危險因素。此病例提醒我們，雖然過去從未報告過，急性膽管炎仍有可能是類鼻疽的可能表現之一。

此病患並無罹患類鼻疽的主要的危險因子，例如：糖尿病，地中海型貧血，腎臟疾病以及曾經有暴露於土壤或水情形。值得注意的是，在她發病的前一周，南台灣曾因海棠颱風侵襲發生淹水的災情。Currie 等人曾報告豪雨和類鼻疽有密切的關係，其可能是起因於降雨會增加環境中細菌的數量及毒性，以及造成土壤表面和水中的細菌散佈於空氣中。病患否認在發病前有暴露於土壤或污水，因此，她可能是透過吸入的方式得到 *B. pseudomallei* 的感染。這再次提醒我們應對類鼻疽保持警覺，特別在歷經豪雨或者水患之後的流行地區。此病例我們也排除勾端螺旋體的感染。是否 C 型肝炎以及原發性膽道肝硬化會使病患容易受到 *B. pseudomallei* 的感染，目前仍不清楚。

在細菌培養結果出爐之前要早期診斷類鼻疽是相當困難的。血液培養基的革蘭氏染色在病患住院的第 2 天即發現有典型的 *B. pseudomallei* 形態 (圖二 A)，但是直到第 4 天才被鑑定出來。此染色結果和細菌鑑定的時間落差也導致延遲給予病患適當的抗生素治療。幸運地，此病患仍存活下來。結合臨床微生物實驗室人員對 *B. pseudomallei* 革蘭氏染色的認識及臨床醫生對類鼻疽的警覺性，對類鼻疽早期的臆斷和給予適當抗生素治療是有幫助的。

綜而言之，在流行地區在經歷豪雨或者水患之後若有出現病患有發燒合併 CXR 有肺炎變化以及其他器官的感染，類鼻疽應考慮在鑑別診斷之一。雖然以前從未被報告過，急性膽管炎仍有可能是類鼻疽的表現之一。血液培養的革蘭氏染色若呈現具特色的 *B. pseudomallei* 形態，在流行地區對菌血性類鼻疽的早期臆斷有幫助的。高度的懷疑的和及早給予對 *B. pseudomallei* 有效抗的生素，在診斷和治療類鼻疽的病患上是必要的。