

## ”peri-anal oedema”を伴った回腸・結腸 クローン病の2例

東京女子医科大学外科

神戸 知充 小坂 博美 安藤 隆史  
李 志成 金丸 洋 宮崎 和哉  
小林 重芳 武田剛一郎 金 哲熙  
木戸 訓一 鈴木 忠 倉光 秀麿  
織畑 秀夫

東京女子医科大学消化器病センター

長 廻 紘

### 2 CASES OF CROHN'S DISEASE OF THE COLON AND ILEUM ASSOCIATED WITH "PERI-ANAL OEDEMA"

Tomomitsu KANBE, Hiromi OZAKA, Takashi ANDO, Sisei RI, Hiroshi KANAMARU,  
Kazuya MIYAZAKI, Shigeyoshi KOBAYASHI, Koichiro TAKEDA, Tetsuhiro KIN,  
Kunichi KIDO, Tadashi SUZUKI, Hidemaro KURAMITSU  
and Hideo ORIHATA

Department of Surgery, Tokyo Women's Medical College

Ko NAGASAKO

Institute of Gastroenterology, Tokyo Women's Medical College

索引用語：クローン病

#### 緒 言

クローン病の概念は1932年 Crohn<sup>1)</sup>により, regional ileitis の病名で報告され, 1934年には, Colp<sup>2)</sup>が盲腸にも同様病変がみられることを報告している。わが国では1939年塩田<sup>3)</sup>が「非特種性限局性腸炎」のなかで Crohn の報告を紹介し, 本邦における症例検討を行い, 典型例の存在には疑問を抱いている。1973年クローン病は消化管のあらゆる部位におこり, 消化管以外にも転移性病変がおこることがある疾患として, 国際的に規定された。そして, 1976年に日本消化器病学会クローン病検討委員会<sup>4)</sup>より「クローン病診断基準(案)」が出され, 1977年には厚生省特定疾患クローン病調査研究班でも診断基準が作られた。

われわれは最近2例の, peri-anal oedema を伴った回腸・結腸クローン病を経験し, 約2年間の経過観察を行っているので報告する。

#### 症 例

〔症例1〕

患者：N. K. 16歳 女。

主訴：右下腹部鈍痛, 常習下痢。

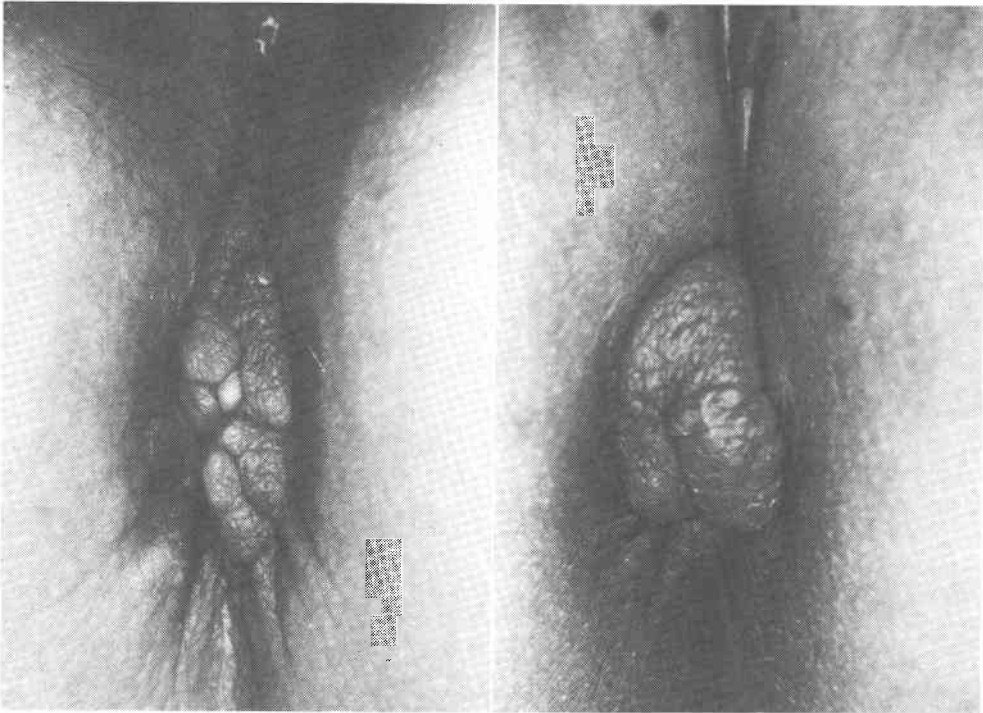
家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：虫垂炎等, 特記すべきことなし。

現病歴：数年来1日1~6回の下痢が続いていたが, 血便はなかった。1979年3月より6カ月間で3.5kgの体重減少を認め, 7月に入り右下腹部鈍痛が軽度になり, 9月7日右下腹部鈍痛, 嘔気のため近医受診し, 虫垂炎の疑いで紹介された。初潮は1978年6月で, 1979年2月より生理は停止している。

初診時理学所見：身長 151cm, 体重33kg, 体温37.1℃, 眼瞼結膜貧血様, 回盲部に約5×7cmの移動性および圧痛のない, 硬い腫瘤を触知し, 軽度の腹部膨隆を認め, 肛門部には肉芽腫様の skin tag (図1. 左)

図1 肛門部病変：peri-anal oedema（左：症例. 1, 右：症例. 2）



を認めた。陰毛はほとんど認められない。皮膚病変、関節炎、虹彩炎などの所見は認められなかった。

血液生化学検査：Hb 10.0g/dl, RBC  $294 \times 10^4/\text{mm}^3$  血清鉄 61mg/dl と軽度の貧血あり, CRP(4+)を示したが, WBC  $3400/\text{mm}^3$ , 他に A/G 0.9, LAP 84 単位, ch-E 0.4 ΔpH, ZTT 17.2 単位, CCLF(±) 以外は正常範囲であった。

Mantoux 反応, 便結核菌検査：陰性。便潜血(benzidine, guaiac) 反応：陰性。

胸部単純X線所見：異常陰影なし。

腹部単純X線所見：小腸のビ慢性ガス像を中等度に認めるが, 完全腸閉塞症状はない。

注腸X線所見(図2)：左側大腸には異常なく, 上行結腸から盲腸の短縮と伸展不良があり, ポリポージスを認め, 裂溝, 瘻孔はなく, 腸結核に似た所見を呈していた。しかし, 終末回腸には, 偏心性狭窄所見, タッシュ様変形, そして縦走潰瘍が明らかで, クロウン病と診断した。

大腸内視鏡所見(図3)：上行結腸下部から盲腸にかけて, 多発するポリープ, 薄い白苔を有する数個の潰瘍および, 強い管腔狭窄所見を認める。狭窄のため終末回腸の観察は不可能であった。同部の生検所見では,

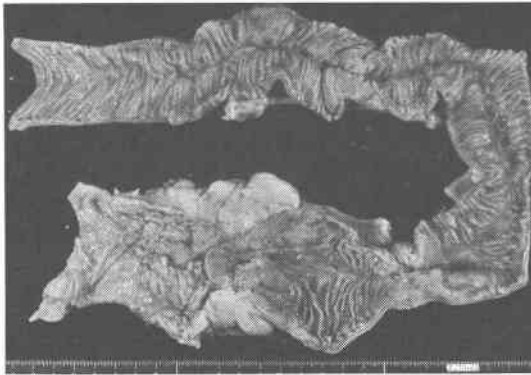
図2 症例1. 注腸所見：矢印は回腸盲腸移行部。上行結腸と盲腸の, 炎症性ポリポージス, 終末回腸の偏心性狭窄と縦走潰瘍



図3 症例1. 内視鏡所見：炎症性ポリポージスと、短い不整形潰瘍及び内腔の狭窄所見。



図4 症例1. 切除標本所見：結腸・盲腸の不整形潰瘍及び炎症性ポリポージスと、回盲部の狭窄。回腸の典型的な縦走潰瘍が、腸間膜附着側に認められる。



非特異的な炎症性変化を認めるのみで、サルコイド様非乾酪性肉芽腫は認められなかった。

手術所見および切除標本：終末回腸と盲腸に、右付属器が癒着し、手拳大の腫瘤を形成し、病変部腸管の表面を腸間膜脂肪がはうように覆っていた。周囲のリンパ節の腫脹や、腹水貯留は認められない。盲腸・上行結腸は著明に短縮し、腫瘤の一部を形成し、回腸にも約1.5mにわたり病変を認めたため、約1.5mの回腸切除を伴う右結腸半切除、右付属器切除、小腸横行結腸端々吻合術を施行した。切除標本の内腔(図4)は病変部大腸で、多発性の炎症性ポリープと不整形潰瘍を認め、回盲部で管腔の狭窄があり、回腸の腸間膜附着側に19cmと20cmに及ぶ縦走潰瘍を認めた。またここに供覧した標本(図4)とは別に、口側約1mの回腸にも8cmに及ぶ縦走潰瘍が腸間膜附着側に認められた。

図5 症例1. 切除標本組織所見：多核巨細胞を含む非乾酪性肉芽腫、全層性炎症所見と裂溝を認める。

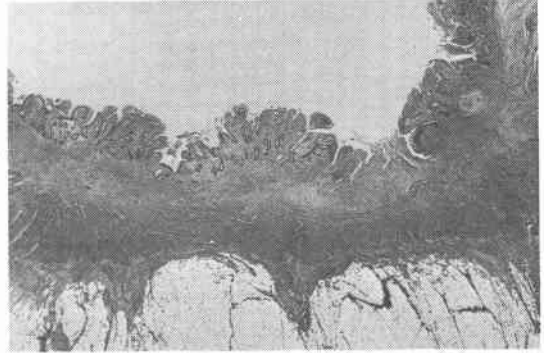


図6 症例1. 術後6ヵ月目の内視鏡所見：吻合部口側の空腸のアфта様潰瘍(矢印)。



組織所見(図5)：全層性の炎症像で裂溝やサルコイド様非乾酪性肉芽腫を認める。肛門部病変の生検所見には特徴的変化は認められなかった。

臨床経過：術前約1ヵ月間は不完全イレウス症状のため高カロリー輸液を行い、全身状態の改善をまち、1979年10月9日に前記のごとく手術を施行した。術後経過は良好で、下痢は消失し排便回数も1~2回/日となり、約1ヵ月で退院する。術後4ヵ月で6kgの体重増加および、生理の再開を認め、陰毛も増加してくる。術後6ヵ月の内視鏡検査では(図6)吻合部より約20cmにわたる空腸にアфта様潰瘍が散見する。しかし残存大腸には異常なく、Salicylazosulfapyridine(以後SASPと略す)の投与を開始し、約2年後の現在、病状の悪化は認められない。

〔症例2〕

患者：T. I. 15歳 女

主訴：下痢，腹部鈍痛，食欲不振。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴： //

現病歴：1979年3月中旬より上記主訴があり，近医で投薬を受けるも改善なく，下痢は1日3～4回続き，体重も5kg減少し，1980年1月14日外来受診する。初潮は1978年8月，第2回生理は同年12月で以後停止している。

初診時理学所見：身長155cm，体重37.5kg，体温37℃，眼瞼結膜貧血様，腹部所見異常なく，肛門部には〔症例1〕と同様な，肉芽腫様の edematous skin tag (図1.右)を認め，陰毛はほとんど認められなかった。他に皮膚，眼球，関節などの異常は認められなかった。

血液生化学検査：Hb 7.8g/dl，RBC  $378 \times 10^4/\text{mm}^3$  血清鉄41mg/dlとかなりの鉄欠乏性貧血を認め，CRP (2+)，WBC  $14300/\text{mm}^3$ ，A/G 0.6，LAP 68単位，ch-E 0.26 ΔpH，Al-p 15.2単位，ZTT 26.2単位の他は正常範囲であった。

Mantoux 反応，便結核菌検査：陰性。

便潜血 (benzidine, guaiac) 反応：陽性。

胸腹部単純X線所見：異常陰影認められず。

注腸X線所見 (図7)：下行結腸から上行結腸にかけて，慢性な病変があり，縦走潰瘍と，cobblestone appearance が認められ両結腸曲の鈍化を伴った腸管短縮，haustrum の消失，軽度の狭小化がみられる。上・

図7 症例2. 注腸所見：結腸全体に及ぶ玉石像，縦走潰瘍，ニッシュ，裂溝を認める。



図8 症例2. 小腸造影所見：回腸の縦走潰瘍 (矢印の区間)

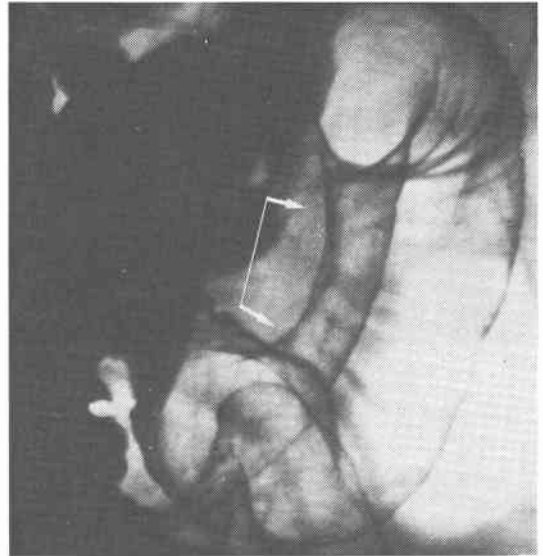
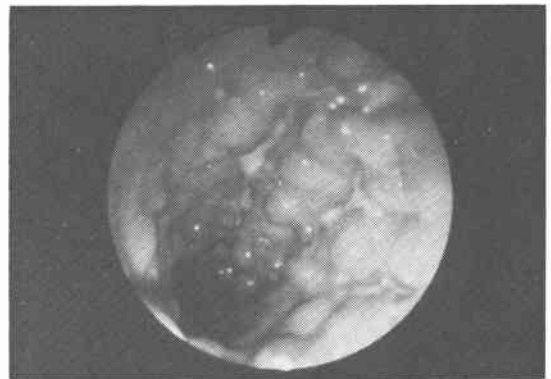


図9 症例2. 大腸内視鏡所見：縦走潰瘍と玉石像



下行結腸には，不整形のニッシュ，裂溝を思わせる小突出を認める。

小腸造影X線所見 (図8)：終末回腸に線状潰瘍を3カ所認め，skip lesion と診断した。

大腸内視鏡所見 (図9)：S状結腸肛側に数個の aphthoid ulcer を認め，下行結腸から上行結腸にかけて，芋虫状の所見と，cobblestone appearance を認め，白苔を有する縦走潰瘍が散見される。回盲弁の変形は比較的強く，その機能は認められない。終末回腸 (図10) 約30cm にわたり約3mm大の潰瘍が数カ認められ，管腔の偏心性の引きつれ，粘膜の集中を認めた。

生検組織所見 (図11)：2回にわたり，計18カ所の大

図10 症例2. 終末回腸内視内腸所見: discrete ulcer



図11 症例2. 大腸生検組織所見: 高度のリンパ球増生とサルコイド肉芽腫.

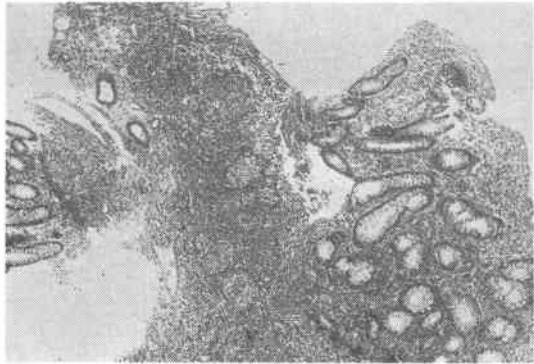


図12 症例2. SASP 内服療法開始後5カ月目の大腸内視鏡所見: 下行結腸肛側の多発するアフタ様潰瘍.



### 考 察

症例1は不完全イレウスのため、小腸の精査が出来ず、注腸検査では、回盲部病変が主体で、回腸盲腸角の消失、内腔の狭窄が強く、炎症性ポリポージスの所見と合わせ、腸結核のようであるが、回腸の所見で明らかな縦走潰瘍、非対称性管腔変化を認め、クローン病と診断した。

症例2は、便潜血陽性で、注腸の大腸所見からは、びまん性病変が連続的に認められ、縦走潰瘍をたどることが容易でなかったため、潰瘍性大腸炎とも考えられたが、寛解像、粘膜萎縮像等認められず、回腸に skip lesion を認め、直腸病変もなく、内視鏡検査では、長廻ら<sup>9)</sup>が述べているように、aphthoid ulcer, discrete ulcer, longitudinal ulcer, cobblestone appearance が、非常によく分り、生検組織所見も含めクローン病と診断した。

以上、大腸のレントゲン所見だけでは、腸結核、潰瘍性大腸炎と似ていたが、小腸所見および内視鏡所見で鑑別は容易となった。なお、Morson<sup>6)7)</sup>はクローン病の肉眼所見を3つの型に分類している。症例1は stricture, 症例2は、cobblestone の型に相当すると思われる。

肛門部病変および、その組織所見は、クローン病の診断に重要なものとされ、Morson ら<sup>6)~9)</sup>によれば、小腸クローン病では25%、大腸型で75%に、その経過中何らかの肛門病変を認め、特徴的变化でないものもある。また生検でも約40%に sarcoid granuloma が欠如するとしている。Lockhart-Mummery ら<sup>8)10)</sup>によると、肛門部病変は、初発症状としてみられることもあ

腸内視鏡による生検を行い、横行結腸の潰瘍辺縁からの組織片で粘膜の腺管が減少し、配列が乱れており、軽度の杯細胞の減少がある。間質には炎症性細胞浸潤がみられる。粘膜の深部から粘膜下層にかけ高度のリンパ球増生がありその中にサルコイド肉芽腫が数コ見られる。肛門部病変の生検では特徴的变化は認められなかった。

臨床経過: 以上よりクローン病と診断し、SASP 4g/日の投与を開始し、臨床症状の著明な改善とともに下痢は消失し、約4カ月後から生理も再開し、陰毛も増加してきた。5カ月後の注腸、内視鏡検査でも、粘膜の浮腫が軽減し、cobblestone appearance も平低下しおとなしい所見となってきた。しかし下行結腸の肛門側では主病変に接した粘膜に、発赤を伴った aphthoid ulcer が多発して認められるようになり(図12)。肛側への病巣進展が疑われるが、約1年8カ月の現在小康状態を保っている。

り、肛門裂溝、膿瘍、無痛性瘻孔や潰瘍、又無痛性肉芽組織や、下掘れした裂溝を伴った著明な浮腫のある skin tag で、裂溝は肛門管や肛門直腸輪を越えて縦走潰瘍につながることもある。軽症例では、赤色又は暗青白色調の肛門周囲皮ふの浮腫 (peri-anal odema) だけのこともあり、病態が制御されると自然に改善すると報告している。ここに報告した2例は黄白色浮腫状でゴム様の硬度を有す肉芽腫様の変化 (約3×2 cm) (図1)で、生検組織所見では, sacroid granuloma は認められなかった。しかし、手術施行後、また SASP 投与で病態の改善に伴い、その大きさは縮少傾向にあり、性状も柔らかくなってきている。

Morson<sup>6)7)</sup>は、初期病変、病巣の拡大、再発の所見として aphthoid ulcer を挙げている。症例1では、術後6カ月の大腸内視鏡検査で、結腸・空腸吻合部および、その口側空腸に aphthoid ulcer が散見され (図6)、病巣の残存または、再発が考えられる。症例2でも、治療開始後5カ月の内視鏡検査で連続病巣は改善をおもわせる変化を認めたが、下行結腸肛側には、aphthoid ulcer が多発し (図12)、病巣の進展が疑われ、両者とも今後嚴重な経過観察を要する。

Greenstein<sup>11)</sup>によれば63%に手術を行ない、94%に再発し、その89%に再手術を要したと報告しているように術後の再発率が高く、治療は保存療法による病態の改善が第一に行われるべきであるが、Truelove<sup>12)13)</sup>も報告しているように症状の進行は緩徐であるが、その経過中には高率に手術療法が必要となり、長期的な忍耐強い治療を必要とする。

### 結 語

1) 肛門部病変として“peri-anal oedema”を伴った回腸・結腸 Crohn 病の2例を報告した。

2) クロウン病の診断および鑑別診断は、病期・罹患部位により診断の難易度が、左右されるが、種々の部位診断と、内視鏡による性状診断がこれらを容易にする。

この報告の要旨は第16回日本消化器外科学会で示説した。ここに報告した2症例は豊岡第一病院 (山根宏夫院長) において経験し、経過観察を行っている。

### 文 献

- 1) Crohn, B.B., Ginzberg, L. and Oppenheimer, G. D.: Regional ileitis, A pathologic and clinical entity. J Am Med Ass 99 : 1323—1328, 1932
- 2) Colp, R.: A case of nonspecific granuloma of the terminal ileum and cecum. Surg Clin North America 14 : 443—449, 1934
- 3) 塩田広重: 非特殊性限局性腸炎. 日医大誌 10 : 1—12, 1939
- 4) 日本消化器病学会クローン病検討委員会 (委員長: 山形敏一): クローン病診断基準(案). 日消病会誌 73 : 145—156, 1976
- 5) 長廻 紘, 鈴木博孝, 青木 暁ほか: 大腸クローン病の内視鏡像. 胃と腸 10 : 1039—1051, 1975
- 6) Morson, B.C. and Dawson, I.M.P.: Crohn's Disease. In: Gastrointestinal Pathology. Second Edition. Oxford, London, Edinburgh, Melbourne, Blackwell, Scientific Publications, 1979, p 293—312, 542—561, 724—725
- 7) Morson, B.C.: Histopathology of Regional Enteritis (Crohn's Disease), In: Skandia International Symposia on Regional Enteritis (Crohn's Disease). Edited by A Engeland, T Larsson. Stockholm, Nordiska Bokhandelns Förlag, 1971, p 15—33
- 8) Lockhart-Mummery, H.E.: Anal lesions of Crohn's disease. Clinics in Gastroenterology 1 : 377—382, 1972
- 9) Bockus, H.L.: Regional Enteritis (Crohn's Disease) In: Gastroenterology. vol 2. Third Edition. Edited by B.C. Morson, H.L. Bockus, R. H. Marshak, H.R. Hawthorne. Philadelphia, London, Toronto, Saunders, 1976, p 550—644
- 10) Buchmann, P., Keighley, M.R.B., Allan, R.N., et al.: Natural history of perianal Crohn's disease. Am J Surg 140 : 642—644, 1980
- 11) Greenstein, A.J., Sachar, D.B., Pasternack, B.S., et al.: Reoperation and recurrence in Crohn's colitis and ileocolitis. N Engl J Med 293 : 685—690, 1975
- 12) Truelove, S.C. and Pena, A.S.: Course and prognosis of Crohn's disease. Gut 17 : 192—201, 1976
- 13) 土屋周二: クロウン病. 綜合臨 26 : 920—925, 1977