

## 小児期 Crohn 病に関する臨床的検討 —成人 Crohn 病との比較—

福岡大学第1外科

鳥谷 裕 有馬 純孝 内田 博  
二見喜太郎 志村 秀彦

### CLINICAL STUDY ON CROHN'S DISEASE IN CHILDHOOD —COMPARISON WITH ADULT CASE OF CROHN'S DISEASE—

Hiroshi TORIYA, Sumitaka ARIMA, Hiroshi UCHIDA,  
Kitaroh FUTAMI and Hidehiko SHIMURA

First department of surgery, School of medicine, Fukuoka University

教室にて経験した小児期 Crohn 病手術症例 7 例について、成人 Crohn 病と比較しつつ、手術適応、術後再発、術後生活状況などに関する検討を加え報告した。小児例における手術適応は成人例に準ずると思われたが、手術症例の retrospective な検討により術後 X 線学的に再発を認めた症例でも、生活状況は概ね良好であったことを考慮するなら、特に小児期には入院期間をできる限り短くし、身体・精神両面での発育に支障を来すことなく日常生活を送らせることが重要である。このためには、症例によっては早期に手術に踏み切る必要があると思われた。

腸切除は再手術による short bowel syndrome を防ぐ意味でも、最小限にとどめるべきであろう。

索引用語：小児 Crohn 病, Crohn 病手術適応, Crohn 病術後再発, Crohn 病術後 quality of life

#### 緒 言

Crohn 病（以下 CD と略す）に対する治療は、まず保存的療法が優先するという点では意見の一致をみているが、実際にはいずれかの時期に外科的治療が必要となる場合が多く、術後再発の問題も絡めて検討すると、手術適応をどの時点で決定し、切除範囲をどの程度にするかは非常に難しい問題である。

特に、小児期発症例では、身体的発育障害に加え、病変鎮静のための入院期間が長期にわたると、就学状況が不良となり精神面での発育に多大な支障を来すことは必至である。この点で特に小児では、慎重かつ早期に手術適応を決定し、術後 short bowel syndrome などを合併することのないよう、適切な術式を選択することが要求される。

われわれは 7 例の小児クローン病手術症例を経験し、若干の知見を得たので文献的考察を加えて報告す

る。

#### 対 象

昭和53年11月より昭和59年8月までの5年10カ月の間に当院第1外科および第1内科にて経験した CD は 53 例で、このうち 16 歳未満で発症し外科的治療が施行された 7 例（以下小児例と略す）を対象とした。

CD 53 例のうち、16 歳未満発症例は 9 例（17%）、16 歳以上発症例は 44 例（83%）であった。

外科的治療は、16 歳未満発症例では 7 例（78%）、16 歳以上発症例では 20 例（45%）に施行され、小児において手術施行率は高かった（図 1）。

小児例 7 例の性別は 6 : 1 で男児に多く発症した。発症年齢は 7 歳から 15 歳、平均 13.1 歳、診断時年齢は 11 歳から 23 歳、平均 16.9 歳、手術時年齢は 13 歳から 24 歳、平均 18.6 歳であった（表 1）。

#### 目的および方法

外科的治療が施行された小児症例 7 例につき、1) 病変部位および術前状況、2) 術前保存的治療の方法および効果、3) 手術適応および手術々式、4) 術後再発の

図1 クロウン病全症例  
—手術例・保存療法例の頻度—

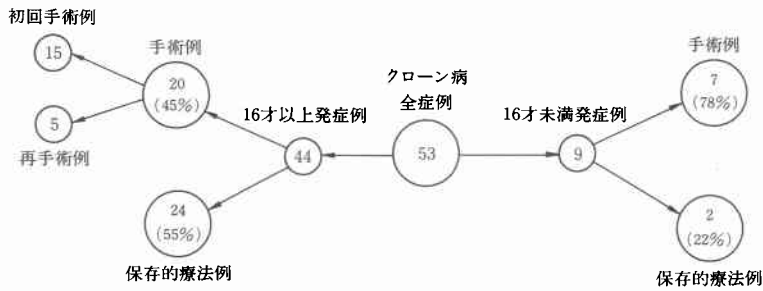


表1 クロウン病小児例

	症 例	性 別	発症時年齢(歳)	診断時年齢(歳)	手術時年齢(歳)
小 児 例	1	女	15	16	16
	2	男	13	15	16
	3	男	15	16	20
	4	男	15	18	18
	5	男	14	19	23
	6	男	7	11	13
	7	男	13	23	24
	男:女=6:1		13.1	16.9	18.6
成 人 例	男:女=2:1		20.9	24.0	24.9
計	男:女=2.7:1		18.5	21.7	22.9

問題について、外科的治療が施行された16歳以上発症例のうち、当科にて初回手術が施行された15例（以下成人例と略す）との比較を中心に検討を加えた。

結 果

1) 病変部位および術前状況

病変部位は小児例では小腸型4例（57%）、小腸・大腸型3例(43%)、大腸型0例、成人例では小腸型9例(60%)、小腸・大腸型4例(27%)、大腸型2例(13%)、で、小腸型、小腸・大腸型の頻度は小児例、成人例ともほぼ同頻度であったが、小児例では大腸型は認められなかった（表2）。

術前状況については、発症から診断までの期間は小児例で平均41.3カ月、成人例で平均36.6カ月であった

表2 クロウン病  
—手術症例の病変部位別頻度—

	小 腸 型	小腸+大腸型	大 腸 型	計
小児例	4	3	0	7
成人例	9	4	2	15
計	13	7	2	22

が、肛門病変を初発症状とした症例7の発症を腹部症状出現時からみると診断まで48カ月、7例の平均31カ月となり、成人例に比較し腹部症状発現後、診断までの期間はやや短いと云える(表3)。成人例では手術施行後CDの診断が得られた症例も3例あり、小児例に

表3 クロウン病小児例：術前状況  
[\*（ ）=腹部症状発症後期間]

	症例	発症～診断	診断～手術	発症～手術	術後期間(月)
小児例	1	7	4	11	47
	2	24	7	31	39
	3	13	50	63	10
	4	36	5	41	43
	5	60	41	101	41
	6	29	21	50	41
	7	120 *(48)	12	132 *(60)	1
平均		41.3 *(31.0)	19.7	61.3 *(51.0)	35.8
成人例		36.6	13.4	49.0	

表4 クロウン病初発症状

	腹痛	下痢	発熱	痔瘻	下血	腹壁瘻孔	膵分泌物	嘔吐 食欲不振
小児例 (7)	5 (71%)	4 (57%)	3 (43%)	1 (14%)	0	0	0	0
成人例 (15)	10 (67%)	7 (47%)	1 (7%)	0	1 (7%)	1 (7%)	1 (7%)	2 (13%)
計 (22)	15 (68%)	11 (50%)	4 (18%)	1 (5%)	1 (5%)	1 (5%)	1 (5%)	2 (9%)

表5 クロウン病—術前治療内容—

	ED	TPN	ED+TPN	ED+SASP	ED+SH	ED+TPN+SH	SASP	SH	治療(-)
小児例 (7)	3	2	1	1					
	5 (71%)								
成人例 (15)	1	4	2	1	2	1	1	1	2
	5 (33%)			6 (40%)					
計	4	6	3	2	2	1	1	1	2

ED: Elemental Diet

TPN: Total Parenteral Nutrition

SASP: Salicylazosulfapyridine

SH: Steroid Hormone(Predonine)

比べ診断が難しく、内科的治療に反応しにくい症例が多いことも推測された。初発症状は、小児例では腹痛5例、下痢4例、発熱3例、痔瘻1例、成人例では腹痛10例、下痢7例、発熱・下血・嘔吐・食欲不振・腹壁瘻孔・膵分泌物がそれぞれ1例ずつで、いずれも腹痛、下痢が半数以上を占めていたが発熱は小児例において3例(43%)と、成人例に比較すると多く認められた(表4)。

## 2) 術前保存的治療の方法および効果

術前保存的治療は、Elemental Diet (ED), Total Parenteral Nutrition (TPN) を中心に施行されていた。小児例ではED単独、TPN単独治療例が5例(71%)を占め、薬物療法は1例(14%)に施行されたのに対し、成人例ではED単独、TPN単独治療例は5例(33%)、にすぎず、薬物療法も6例(40%)に施行されていた。また術前保存的治療が全く行われなかった症例も2例認められた(表5)。

術前保存的治療の効果は腹痛・腹満・下痢の自覚症状、血沈・CRP・ $\alpha_2$ -globulinの炎症所見、およびX線学的所見について検討した。自覚症状についてみると、改善を認めた症例は小児例では4例(57%)、成人例で

は10例(77%)、炎症所見についてみると、改善例は小児例では3例(43%)、成人例では10例(77%)で、いずれも小児例において改善を認めにくかった。X線学的所見では、小児例、成人例ともに改善を認めた症例はなかった(表6)。

表6 クロウン病、術前治療効果

		自覚症状	炎症所見	X線所見
小児例	悪化	2 (33%)	1 (14%)	2 (33%)
	不変	1 (14%)	3 (43%)	4 (67%)
	改善	4 (57%)	3 (43%)	0
成人例	悪化	1 (8%)	1 (8%)	3 (25%)
	不変	2 (15%)	2 (15%)	9 (75%)
	改善	10 (77%)	10 (77%)	0

炎症所見: ESR >10mm/hr  
 $\alpha_2$ -gl >10%  
 CRP >1(+)

表7 クロウン病—手術適応—

	狭窄	瘻孔	出血	成長障害	難治	腹部膿瘍	計
小児例 (7)	2 (29%)	3 (43%)	1 (14%)	1 (14%)	0	0	7
成人例 (15)	8 (53%)	4 (27%)	0	0	2 (13%)	1 (7%)	15
計	10 (45%)	7 (32%)	1 (4.5%)	1 (4.5%)	2 (9%)	1 (4.5%)	22

3) 手術適応および手術々式

手術適応は、狭窄、瘻孔(内瘻、外瘻)、難治、大量出血、成長障害、膿瘍形成などであるが、小児例では難治、膿瘍形成は認められず、成人例では大量出血、成長障害は認められなかった。また、狭窄は小児例では1例(29%)であったが、成人例では8例(53%)と成人例に多く、瘻孔は小児例では3例(43%)に認められたが、成人例では3例(27%)と小児例に多く認めた(表7)。

手術々式は、小児例では、回腸・盲腸切除術4例、小腸部分切除術1例、回盲部切除術+小腸部分切除1例、結腸全摘術+回腸直腸吻合術1例に施行され残存小腸は180~400cm、平均288cmであった(表8)。

4) 術後再発

小児例7例のうち、術後6カ月以上経過した6例(症例1~6)について、術中内視鏡所見による残存病変の有無と術後再発との関係につき検討した。ここで再発は、残存病変の再燃および残存病変の存在しない部分に新たに病変が出現したものの両者を含めた。

6例全例に術中内視鏡を施行し、残存病変は5例(症例2~6)に認められた。残存病変の認められた5例のうち3例(症例4, 5, 6)に術後6カ月~16カ月後

表8 クロウン病：手術々式

	小児例	成人例	計
回腸・盲腸切除	4	3	7
小腸部分切除	1	7	8
回盲部切除+小腸部分切除	1	0	1
右半結腸切除	0	1	1
S状結腸切除+小腸部分切除	0	1	1
結腸全摘+回腸直腸吻合	1	3	4
計	7	15	22

のX線学的検査にて、吻合部より口側に再発像を認めた。残存病変の存在しなかった症例1には術後再発は認めていない(図2)。また術後の生活状況は概ね良好で、術後10カ月~47カ月、平均37カ月経過しているが、腹痛、腹満などの症状はほとんど認められず、排便回数は残存腸管180cmの症例2を除き3行/日以下である。また著明な体重減少も認められず、全例体重増加、あるいは不変を示している(図3)。

考 察

CDの診断に際しては、まずCDという疾患の存在を念頭に置き患児を診断することが要求されよう。特に学童初期に消化器症状、発熱などを主訴として発症

図2 クロウン病  
—術中内視鏡による残存病変の有無と再発—

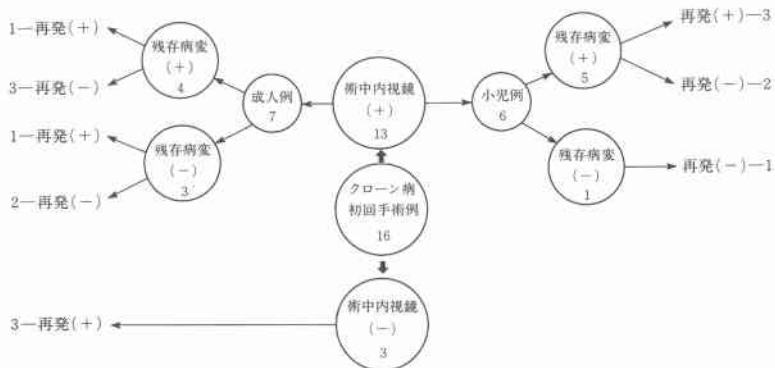
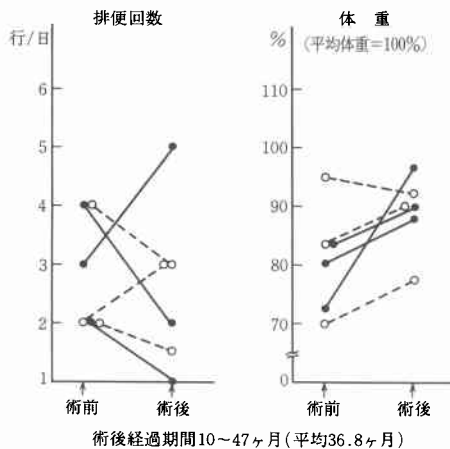


図3 クロウン病小児例  
排便回数, 体重の推移



した場合、細菌性腸炎、Virus 性腸炎などの疾患とともに、CD、潰瘍性大腸炎などの非特異性炎症性腸疾患の存在も忘れてはならない<sup>1)</sup>。

また、Punit ら<sup>2)</sup>によれば67例の16歳以下発症のCDのうち、4例が発育障害のみで発症していたとの報告もあり、成長障害を初発症状として来院した場合CDの可能性に十分留意しておくべきであろう。

近年、肛門病変の合併も注目され、肛門周囲膿瘍および難治性痔瘻、裂肛、浮腫性皮垂、肛門病変術後の難治創などが主な病変とされ<sup>3)</sup>、CDに対する合併頻度は60~80%<sup>3,4)</sup>と考えられている。

教室で経験したCD 53例のうち肛門病変を合併した症例は38例(72%)で、このうち19例(36%)が肛門病変を初発症状として発症していた。

以上の点を手掛りとして、X線学的所見、内視鏡所見、病理組織学的所見を参考にして確定診断を下すが、これらの形態学的所見においては小児例としての特徴的所見を列挙できるだけの検討は成されていないのが現状であり教室例でも同様であった。

次に教室例をもとに、小児CDの手術適応、手術々式、術後経過につき検討を加えた。

CDの治療方針は、八尾ら<sup>5)</sup>が、①通常の社会生活を営める期間をできる限り長期間維持すると同時に生命の延長を図り、②入院時には、自覚症状、栄養状態の改善、血清アルブミン値、コレステロール値、血沈、CRP、 $\alpha_2$ -グロブリンなどの検査値の正常化に務めることであると述べているように根治的治療は難しく保存的療法による寛解導入を目標としている。しかし、CD

の手術施行率は発症後20年で78%<sup>6)</sup>、吻合を含めると95%<sup>7)</sup>、15歳以下発症のCDでは67%<sup>8)</sup>などの報告にみられるように、外科的治療が必要となる頻度はきわめて高い、また、外科的治療後の再発率も術後1~10年で34~67%<sup>2)7)9)~11)</sup>、10~15年で60~80%<sup>5)</sup>といわれ、術後再発率も非常に高い。このように内科的治療が主体を成すべきであるにもかかわらず、その治療効果は上がっておらず、外科的治療が大部分の症例で関与せざるをえない点がCDの治療の困難さを示しているといえよう。

#### 1) 手術適応および手術々式

教室における小児例の手術適応は、瘻孔形成(内瘻、外瘻を含む)、狭窄、出血、成長障害で、成人例ではこれらに加えて難治、膿瘍形成も認められた。局所的な狭窄に対してのみ外科的治療を施行した<sup>2)</sup>との報告や、大腸型における重症大腸炎を手術適応に含めた<sup>9)</sup>との報告もあるが、手術適応は概して成人例に準じている場合が多い<sup>1)12)13)</sup>。

小児例の手術適応として特徴的なものは成長障害である。Punit ら<sup>2)</sup>によれば、67例の16歳未満発症例のうち21例(31%)に成長障害が認められたと報告されており、教室例でも7歳で発症した症例6が平均体重比93%であった以外は、全例15%以上の術前体重減少を示していた。幼若児であるほど成長障害は重大な所見で、後に心身ともに重篤な発育障害を来す可能性がある。したがって保存的治療期間中に体重・身長が増加を認めにくく、しかも病変が局限している症例では速やかに手術適応とすべきであろう。Castile ら<sup>8)</sup>は、外科的治療を必要とする患者は保存的療法が施行されている患児に比べ身長・体重とも発育は悪いが、術後の成長率に関しては良好で、発育障害が著明な患児に対しては、一時的にでも寛解期を得て就学状況を良好にし、成長率を向上させるために外科的治療が必要であると述べている。

次に、手術々式は狭窄部、肛門側狭窄部を含めた瘻孔形成部、出血部などの病変部位の、必要最少限度の切除に努めるべきである。前述のごとく、術後再発率は非常に高く、再発例の再手術率も術後10年で約50%に達する<sup>8)</sup>といわれる。また、根治手術施行例では病変を残存させた症例に比べ術後再発率が低い<sup>7)</sup>ともいわれるが、教室例では術中内視鏡にて残存腸管を検索した18症例中、漿膜側より指摘しえない微細病変を含め残存腸管に病変部を残さざるを得なかった症例は13例あり、病変部を完全に切除することは非常に困難であ

る。また残存病変が存在しない症例で再発を認めた症例も経験しており、病変部の広範囲切除、いわゆる根治手術を施行することにより再発率を低下させることは不可能<sup>9)</sup>と考えるべきであろう。さらに発症が若年で、術後経過が長くなる小児例では、再手術、再々手術が必要となる可能性が高く、このための short bowel syndrome の合併は回避しなければならない<sup>14)</sup>。したがって小児例については手術適応を成人例より拡大し、特に成長障害を認め病変部位が局限している症例では、早期にできる限り切除範囲を縮小した外科治療を行うことが必要であろうと思われる。

## 2) 術後再発および術後生活状況

われわれは術中内視鏡検査により残存腸管の病変の有無を確認し術後再発を検討する際の参考にすると同時に、切除範囲決定の指標にしている。小児例については7例全例に術中内視鏡を施行しているが、初回手術後6カ月以上経過した6例のうち、再発を認めた3例はいずれも残存腸管に病変を認めた症例であった。再発の認められていない3例のうち症例1は病変部位が回腸末端部に局限していたため、いわゆる根治手術が可能であった。根治手術が施行された症例の術後再発率が非根治手術例の術後再発率に比べ、有意に低いかどうかは疑問の多い点であるが<sup>7)11)15)</sup>、小腸・大腸型CD症例の胃粘膜、直腸粘膜の生検にて肉芽腫の存在を認める症例もあり<sup>16)~18)</sup>、CDに関する限り組織学的な根治手術を期待することは不可能と思われる。現段階では病変範囲が狭く、肉眼的病変部位を完全に切除できるような症例では、確かに再発はおこりにくく、再発までの期間が長いであろうことは推測できるが<sup>7)11)19)</sup>、症例2,3のように残存病変を認めても再発が認められない症例や、残存病変を認めなくても再発を来す症例もあることは興味深い。残存病変の種類をみても、再発例では小潰瘍瘢痕、粘膜ヒダの集中を伴う潰瘍、縦走潰瘍瘢痕などの病変が認められ、非再発例でも全く同様の病変が認められていた。術後再発に関しては、今後、非再発例に関する長期に渡る詳細な経過観察に期待する点大きい。

一方、術後の生活状況については、70~80%の症例が日常生活にはほとんど制限がなくおおむね良好な健康状態を維持しているとの報告が多い<sup>8)10)</sup>。Bergmanら<sup>7)</sup>は、術後症例の quality of Life (QL) につき検討し、87%がQL-Iであったと述べている。教室例の検討でも、X線学的再発の有無にかかわらず、大部分の症例がQL-Iを示していることを報告している<sup>20)</sup>。小児

例においても同様の結果を得、術後の就学・就業状況は良好で、体重増加も認められ、排便回数も3回以下程度に落ちつき、腹痛・腹満などの症状もほとんど認められていない。しかし、一時的に下痢、血液検査(CRP, 血沈,  $\alpha_2$ -globulin など)にて炎症所見の悪化を認めた症例も見られた。

そこで現在では、特に残存病変の存在する症例については、術後も6カ月~1年ごとに病変部の精査および鎮静化を目的に入院加療を行い血液検査結果の正常化に努めるべきではないかと考えている。また外来通院中も、自覚症状および血液検査結果の悪化の有無を詳細に観察し、再発の徴候を一早く発見することも必要である<sup>14)</sup>。

いずれにしても、CDの治療の基本が保存的治療にあることに異論はないと思われるが、特に小児期では、入院期間をできる限り短かくし、就学状況を良好にし、身体・精神両面での発育に支障を来すことなく、症例によっては早期に手術に踏み切ることが必要と思われる。教室例の検討<sup>20)</sup>では、X線学的な術後再発はほとんど1年以内に認められており、術後約3年間は良好な日常生活を送っていることを報告した。

成長期にある小児例においては、この寛解期を得ることが重要であろう。

## まとめ

小児のCrohn病につき、治療方針を決定するには症例が少ないため十分な検討ができなかったが、若干の知見を得たので今後の治療の一助にしたいと考え報告した。

1) Crohn病手術症例27例中、15歳以下発症例で外科的治療を必要とした7例を対象に検討した。手術率は小児例で78%、成人例で45%であった。

2) 手術適応、手術々式は成人例に準じて考慮されたが、成長障害が小児における特徴的適応であった。

3) 手術症例において、術前保存的治療にてX線学的に病変の改善を認めた症例はなかった。

4) 術後再発率、再手術率の高さを考慮するなら切除範囲は可及的最小限に止めるべきである。

5) X線学的に術後再発を認めた症例でも、生活状況はおおむね良好で、通常就学、就業が可能であった。したがって成長期にある小児では、良好な就学状況を得るためにも適切な手術適応の決定が要求される。

稿を終るに臨み、本論文の大部分の症例を御紹介頂き、適切な御指導を賜った福岡大学第1内科、八尾恒良助教授に深甚なる感謝の意を表します。

## 文 献

- 1) Mcneish AS, Hughes CA: Crohn's disease in childhood. In: *Inflammatory Bowel Disease*. Edited by RN Allan, MRB Keighley, JA Williams et al. London Churchill Livingstone Edinburgh 1983, p338—342
- 2) Punit J, Mcneish AS, Allan RN: Long term prognosis of Crohn's disease with onset in childhood and adolescence. *Gut* 25: 329—336, 1984
- 3) 高野正博, 藤好建史, 相良泰至ほか: 肛門病変・クローン病. *日本大腸肛門病会誌* 36: 506—517, 1983
- 4) Buchmann P, Keighly MRB, Allan RN et al: Natural history of perianal Crohn's disease. Ten year follow-up: A plea for conservatism. *Am J Surg* 140: 642—644, 1980
- 5) 八尾恒良, 岡田光男, 洲上忠彦: クローン病の診断と治療. *日本大腸肛門病会誌* 35: 478—485, 1982
- 6) Mekhjian HS, Switz DM, Watts HD et al: National cooperative Crohn's diseases study. Factors determining recurrence of Crohn's disease after surgery. *Gastroenterology* 77: 907—913, 1979
- 7) Bergman L, Krause U: Crohn's disease, A long-term study of the clinical course in 186 patients. *Scand J Gastroenterol* 12: 937—944, 1977
- 8) Castile RG, Talender RL, Cooney DR et al: Crohn's disease in children. Assessment of the prognosis of disease, growth and prognosis. *J Pediatr Surg* 15: 462—469, 1980
- 9) Hymas JS, Grand RJ, Colondy AH et al: Course and prognosis after colectomy and ileostomy for inflammatory bowel disease in childhood and adolescence. *J Pediatr Surg* 17: 400—405, 1982
- 10) De Dombal FT, Burton I, Goligher JC: Recurrence of Crohn's disease after primary excisional surgery. *Gut* 12: 519—527, 1980
- 11) Pennington L, Hamilton SR, Bayless TM et al: Surgical management of Crohn's disease. *Ann Surg* 192: 311—318, 1980
- 12) Wilk PJ, Fazio V, Turnbull Jr RB: The dilemma of Crohn's disease: Ileoduodenal fistula complicating Crohn's disease. *Dis Colon Rectum* 20: 387—392, 1977
- 13) 有馬純孝, 二見喜太郎, 内田 博ほか: クローン病. *臨と研* 61: 2169—2175, 1984
- 14) 内藤広郎, 亀山仁一, 佐々木巖ほか: クローン病の術後病態—とくに早期再発診断の指標について—. *日外会誌* 83: 1411—1416, 1982
- 15) 岸川英樹, 古賀明俊, 大里敬一: クローン病術後再発に関する検討—とくに術中内視鏡の意義について—. *日外会誌* 81: 666—675, 1980
- 16) 八尾恒良, 岩下明德: Crohn 病の胃・十二指腸病変. *胃と腸* 18: 1323—1334, 1983
- 17) 田中昌宏, 長沢貞夫, 酒井秀朗ほか: 幽門狭窄症状を呈した胃・十二指腸クローン病の一例. *日消病会誌* 79: 1464—1469, 1982
- 18) Koreliz BI, Sommers SC: Rectal biopsy in patient with Crohn's disease. Normal mucosa on sigmoidoscopic examination. *JAMA* 237: 2742—2745, 1977
- 19) Watermann IT, Pena AS: The long-term prognosis of ileorectal anastomosis and proctocolectomy in Crohn's disease. *Scand J Gastroenterol* 11: 185—191, 1976
- 20) 有馬純孝, 伊藤英明, 八尾恒良ほか: Crohn 病手術後の経過—再発の問題を中心として—. *胃と腸* 19: 277—285, 1984