

成人腸無回転症を伴った結腸放線菌症の1例

福島県立医科大学第1外科

斎藤 拓朗 土屋 貴男 木暮 道彦 遠藤 幸男
鈴木 弘行 阿部 幹 井上 仁 元木 良一

成人腸無回転症を伴った結腸放線菌症の1例を経験したので報告する。

症例は54歳の女性。左下腹部痛と便秘を主訴に来院した。左下腹部に圧痛を伴う8×7cmの可動性の無い腫瘤を触知した。注腸X線検査と大腸内視鏡で、S状結腸に境界不明瞭な全周性の内腔狭窄と粘膜面の粗大顆粒状変化を認め、腹部 computerized tomography で左下腹部の腫瘤に一致して腸管壁の肥厚像を認めた。術前には炎症性腸疾患と結腸癌の鑑別ができず、開腹術を施行したところ腸回転異常症 (non-rotation type) の合併が明らかとなった。腫瘤はS状結腸に存在し、回盲部と横行結腸を巻き込み、それぞれに狭窄部を形成していた。回盲部からS状結腸までを切除し回腸瘻を造設した。組織学的に悪性像は無く、腫瘤は線維化を伴う炎症性肉芽で、多発した膿瘍の中心部に放線菌の菌塊 (sulfur granule) を認め、結腸放線菌症と診断した。

Key words: actinomycosis of the sigmoid colon, non-rotation of the midgut in adult

はじめに

腹部放線菌症は比較的古く知られた疾患である。最近われわれは、成人腸無回転症を伴い、病巣が横行結腸、回盲部に進展したS状結腸放線菌症の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：54歳、女性。

主訴：左下腹部痛、便秘。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：元来便秘気味（2～3日に1度の排便）であったが、平成3年5月下旬より便柱の狭小化に気付いた。6月1日から排便が無く、左下腹部痛を伴うため当院内科を受診した。注腸X線検査、大腸内視鏡検査の結果、びまん浸潤型大腸癌によるイレウスの診断で平成3年6月12日、当科転科となった。

入院時現症：身長145cm、体重52.5kg。体温36.6℃。眼瞼結膜に貧血なく、眼球結膜に黄染なし。表在リンパ節の腫脹もなかった。腹部はやや膨隆し、左下腹部に手拳大（8×7cm）の可動性の無い腫瘤を触知した。同部に圧痛を認めたが筋性防御は認められなかった。腸雑音はやや亢進していた。

入院時検査成績：白血球数8,100/mm³と白血球増加はないがCRP 7.1mg/dlと炎症反応を認め、空腹時血糖が151mg/dlと上昇し、血清アルブミン値2.9g/dlと低下していた。他の血液生化学検査や腫瘍マーカーは正常範囲であった (Table 1)。

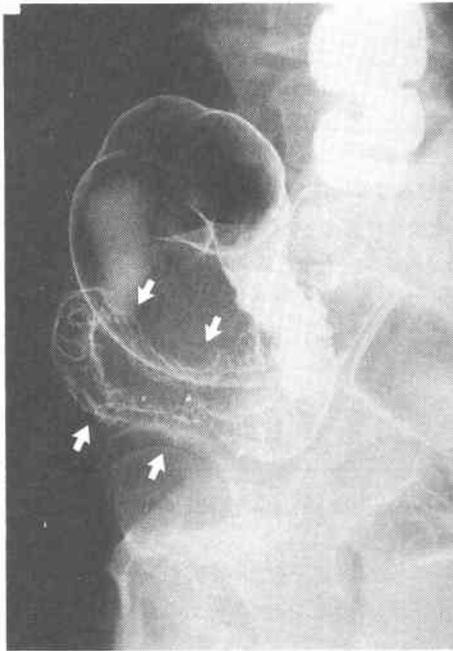
注腸X線検査：S状結腸に約11cmにわたる腸管狭

Table 1 Laboratory data on admission

RBC	369×10 ⁴ /mm ³	Na	139 mEq/L
Hb	10.5 g/dl	K	3.8 mEq/L
Hct	31.3 %	Cl	103 mEq/L
WBC	8100 /mm ³		
Plt	30.8×10 ⁴ /mm ³	T.P	6.8 g/dl
		Alb	2.9 g/dl
TB	0.5 mg/dl	α ₁	1.1 %
GOT	11 IU/L	α ₂	12.1 %
GPT	7 IU/L	β	14.2 %
LDH	284 IU/L	γ	23.4 %
ALP	353 IU/L	Alb	46.2 %
γ-GTP	54 IU/L		
TTT	2.3 KU	BUN	7 mg/dl
ZTT	13.7 KU	CREA	0.4 mg/dl
CHE	252 IU/L	UA	4.1 mg/dl
T.chol	165 mg/dl	CRP	7.1 mg/dl
T.G.	95 mg/dl		
		AFP	5.0 >ng/ml
FBS	152 mg/dl	CEA	1.5 ng/ml

<1992年4月1日受理>別刷請求先：斎藤 拓朗
〒960-12 福島県福島市光ヶ丘1 福島県立医科大学
第1外科

Fig. 1 Barium enema study revealed a 11cm stenosis with wall rigidity and irregular demarcation. Double contrast study showed thickening of the mucosal fold but no definite ulcer.



窄、辺縁不整、粘膜襞の肥厚を認めた。潰瘍の形成はなかったが、腸管壁が次第に細くなる。いわゆる tapering margin 像と腸索の可動性の消失を認めた。入院以来検査時まで1度も排便が無かったため、造影剤の注入は下行結腸にとどめた (Fig. 1)。

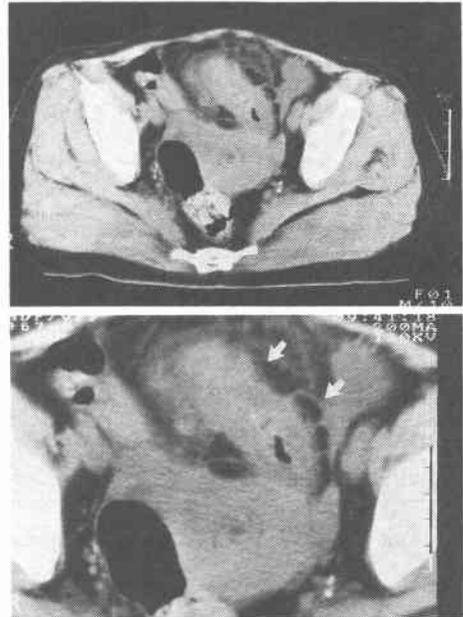
大腸内視鏡検査：肛門輪から30cmの部位に全周性の内腔狭窄を認め、ここより口側の観察はできなかった。狭窄部の粘膜面に境界不明瞭な粗大顆粒変化を認めたが明らかな潰瘍の形成は無く、生検の結果は group 1であった。

腹部 computerized tomography (以下CT)：肝、膵、腎、脾、子宮および付属器に異常を認めなかった。左下腹部の腫瘤に一致して腸管壁の肥厚像を認めた (Fig. 2)。

腹部腫瘤は当科入院後も徐々に増大したことから悪性腫瘍を疑い、S状結腸のびまん浸潤型大腸癌の術前診断で、平成3年6月21日手術を施行した。

手術所見：開腹すると、下行結腸は後腹膜に固定されていたが十二指腸から横行結腸に至る腸管は共通の腸管膜を有し結腸が左側に変位した腸回転異常症の状態、non-rotation type (90度回転症の無症状型)で

Fig. 2 Abdominal computerized tomography. Arrow indicates the thickened wall of sigmoid colon.

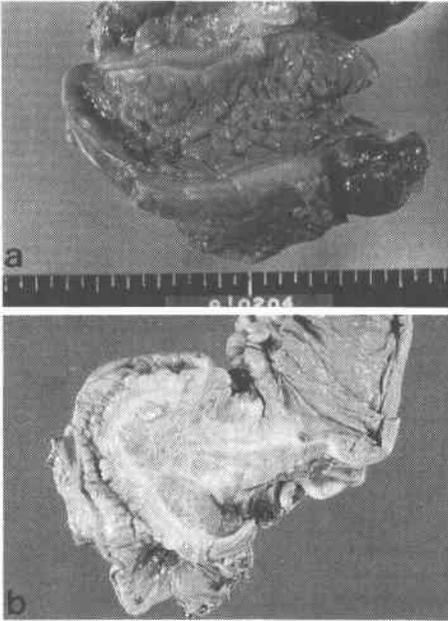


あった。腫瘤は腹膜反転部から20cmのS状結腸に存在し、腸無回転症のためS状結腸に接して存在した回盲部と、脾曲部から15cm口側の横行結腸を巻き込んで、それぞれに狭窄部を形成し、前方では膀胱壁に強く癒着していた。膀胱壁は剥離できたが回盲部と横行結腸は腫瘤と一塊となっていたため、回盲部から26cm口側の回腸～腹膜反転部から口側15cmのS状結腸までを腫瘤とともに切除した。術中の腹水細胞診で腹膜中皮細胞に混じって異型の強い細胞の集塊が散見され癌性腹膜炎の可能性が示唆されたため、回腸-S状結腸吻合は行わず回腸瘻を造設した。

摘出標本：摘出標本は全長102cmで、S状結腸は全周性の管状壁肥厚と硬化を呈し、粘膜面に粗大顆粒状変化を認めたが明らかな潰瘍の形成はなかった。腫瘤は10×7.6cm、健常粘膜面と病変部の境界は不明瞭で、断面は黄色調を呈し、腫瘤と一塊になった回盲部(回盲弁の口側5cmから肛門側5cmにかけての部位)と横行結腸の中部(回盲弁から40cm肛門側)には内腔狭小化と壁肥厚・硬化を認めたが、粘膜面は浮腫性の変化を認めるのみであった (Fig. 3)。

病理組織所見：粘膜下層から漿膜にかけて、形質細胞・リンパ球を主体とする炎症細胞浸潤を伴った炎症

Fig. 3 The mucosa of the stenotic area of the sigmoid colon was nodular, erosive and edematous without ulceration (a). A longitudinal section through that area showed the presense of a large, ill-defined mass in the wall of sigmoid colon (b).



性肉芽が認められ、一部で膿瘍を形成していた。膿瘍の中心部には周囲に好酸性の棍棒状突起を有する、好塩基性の菌塊 (sulfur granule) を認め、放線菌症と診断した。肉眼的に粗大顆粒状に見えた粘膜面の変化は粘膜下層の線維増生によるものであった。癒着はすべて漿膜側の炎症と線維化によるもので、悪性腫瘍細胞は認められなかった (Fig. 4, 5)。

考 察

放線菌症は口腔、扁桃などに常在する *Actinomyces israelii* によって起こる感染症であるが、抗生物質の発達や生活環境の改善に伴い近年ではまれな疾患となっている¹⁾。

好発部位は頭頸部、胸部、腹部で、このうち腹部放線菌症の占める割合は約20%とされ²⁾、消化管では胃、十二指腸、回盲部、横行結腸、S状結腸に多く発生し硬い結合組織に覆われた慢性炎症性肉芽腫を形成する。確定診断は細菌培養による原因菌種の同定によらねばならないが、病理組織検査で菌塊 (sulfur granule) を認めることでも診断される³⁾。

本症例は、注腸 X 線像で long segment にわたる腸

Fig. 4 A sulfur granule with peripheral eosinophilic club is surrounded by numerous neutrophils ((a): Hematoxylin-Eosin stain, ×100, (b): Gram stain, ×100).

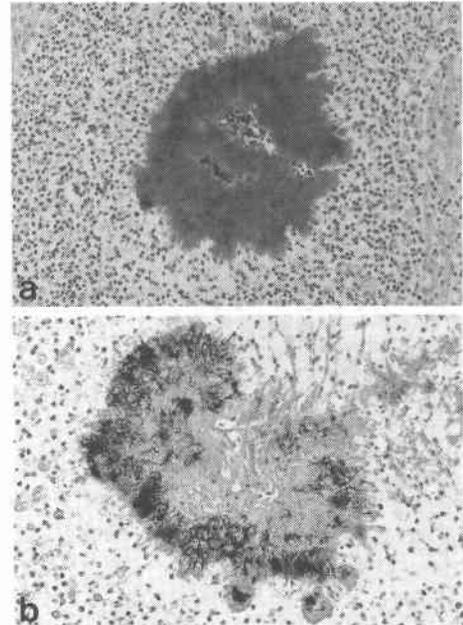
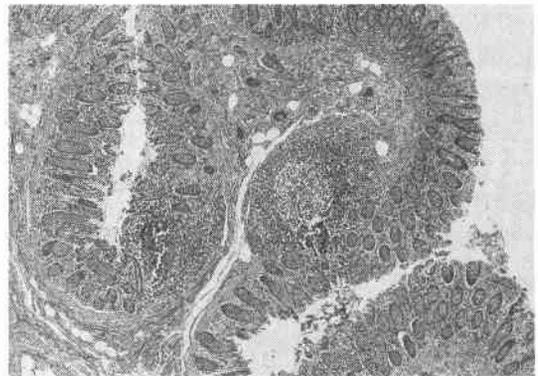


Fig. 5 Microscopically, there was remarkable fibrosis of submucosa in the sigmoid colon of resected specimen (Hematoxylin-Eosin stain, × 40).



管の狭窄 (tapering margin 像)、伸展性不良を認め、二重造影では粘膜に粗大顆粒状変化を認めた。鮫島ら⁴⁾は、報告例から本症の注腸 X 線像の特徴をまとめて、辺縁像では腸管外からの圧迫・狭窄・陰影欠損像、鋸歯状変化をあげ、二重造影粘膜像では圧排狭窄部粘膜の潰瘍形成を伴わない大小結節状陰影、粗大顆粒状

変化、凹凸不整、瘻孔形成などとしている。また内視鏡所見は、粘膜面の発赤・びらん・小隆起、粘膜下からの圧排狭窄を呈し、生検では非特異的慢性炎症の所見を示すとしている。しかしこれらの所見は大腸癌、悪性リンパ腫、クローン病などと類似あるいは共通する所見であり、特にS状結腸はびまん浸潤型大腸癌の好発部位であることから、本症例では術前に放線菌症と診断することが困難であった。中村ら⁹⁾は消化管放線菌症の本邦報告86例を集計し、術前に診断されたものではなく、全例が悪性腫瘍の可能性を否定できなかったとしている。しかし本症例では、術前にCRP 7.1 mg/dlと高値を示しており腸放線菌症を含めた感染症の可能性を念頭におくべきであったと反省される。本症の診断に、穿刺針による吸引細胞診が有用との報告⁶⁾もあるが、放線菌の菌塊は標本のごく一部にしか認められないことから菌塊を証明することは実際上かなり難しいと考えられた。

治療はSulfa剤、Penicillin系、Cephalosporin系の抗生物質の投与と外科的切除である。腫瘤を形成した場合は増生した結合織のため抗生剤が到達しにくく外科的切除の適応となるが²⁾⁵⁾、隣接臓器に炎症がおよび合併切除を要することが多い。われわれの検索しえた1991年までの結腸放線菌症本邦報告例は自験例を含め99例で、91例に病変部を含む腸切除術が施行され、このうち38例に隣接臓器の合併切除が行われていた。放線菌症と腸回転異常症の合併例の報告はなく極めてまれである。本症例では腸無回転症を伴い、S状結腸の炎症が横行結腸・回盲部に波及して、それぞれの部位に狭窄を形成したため、大腸の大量切除を余儀なくされた。放線菌の増殖に適した壊死・瘢痕組織は除去すべきであるが、健常臓器の機能温存を考慮して切除範囲を決定すべきと考えられた。

腸回転異常症は胎生期における1次腸系蹄の回転状態により分類され、成人の無回転症の頻度は0.2~0.5%といわれている⁷⁾⁸⁾。他疾患で施行された検査や手術の際に偶然発見されることが多く、術前診断には消化管造影が重要である⁹⁾。本症例はイレウス状態であったため消化管造影が不十分であり、術前に腸回転異常症を診断できなかった。無回転症では盲腸、上行結腸の病変を腹部左側の病変として認め問題となるが、本症例のようにS状結腸の病変が偏位した結腸に進展する場合もあり注意を要する。

本症例の発生機序に関しては、なんらかの粘膜障害が起り、常在菌である放線菌が組織内に侵入して病

原性を発揮するとされている¹⁰⁾。粘膜損傷の原因として、以前は回盲部に発症するものが多いことから虫垂炎・消化管穿孔などが考えられていたが、最近では横行結腸の発症が増加し¹¹⁾粘膜に魚骨の刺入を認めたとする報告もある¹²⁾。本例の粘膜損傷の機序は不明で標本中に異物も認められなかった。一方、Brewerら¹³⁾は直腸肛門部放線菌症9例中5例に糖尿病を合併していたとし、本邦でも自験例を含む4例に糖尿病を合併していた。糖尿病では、特にコントロール不良の症例で好中球の機能低下を主とする感染防御能低下のため日和見感染症に罹患しやすい状態にあるといわれており¹⁴⁾本症発症の誘因の1つと考えられた。

文 献

- 1) 渡辺一功: 腸放線菌症. 日臨 43: 432-434, 1985
- 2) Weese WC, Smith IM: A study of 57 cases of actinomycosis over a 36-year period. Arch Intern Med 135: 1562-1568, 1975
- 3) Robby SJ, Vickery AL: Tinctorial and morphologic properties distinguishing actinomycosis. N Engl J Med 282: 593-596, 1970
- 4) 鮫島朝之, 大井秀久, 唐仁原寛ほか: 回盲部放線菌症の1例. 日消病会誌 84: 1304-1309, 1987
- 5) 中村 彰, 上尾裕昭, 堤伸一郎ほか: 肉腫との鑑別が困難であったS字状結腸放線菌症の1例. 外科診療 8: 1251-1255, 1989
- 6) Lininger JR, Frable WJ: Diagnosis of pelvic actinomycosis by fine needle aspiration, A case report. Acta Cytol 28: 601-604, 1984
- 7) 中條俊夫: 腸回転異常症. 石田正統編. 外科学. 診断と治療社, 東京, 1972, pQ56-161
- 8) Gohl ML, DeMeester TR: Midgut nonrotation in adult. An aggressive approach. Am J Surg 129: 319-323, 1975
- 9) 島貫公義, 千葉 惇, 板橋邦宏ほか: 成人腸無回転症に伴った盲腸癌の1例. 日臨外医会誌 49: 2357-2362, 1988
- 10) Putman HC, Cantrell JR, Fisher AM: Abdominal actinomycosis. An analysis of 122 cases. Surgery 28: 781-800, 1950
- 11) 松村幸次郎, 田中千凱, 伊藤隆夫: 腹部放線菌症の1例-自験例と本邦報告例の検討. 日外会誌 88: 629-632, 1987
- 12) 米原修治, 小武家俊博, 江藤良三ほか: 横行結腸における放線菌症の2例. 広島医 35: 1300-1304, 1982
- 13) Brewer NS, Spencer RJ, Nichols DR: Primary anorectal actinomycosis. JAMA 288: 1397-1400, 1974
- 14) 斎藤 厚, 重野芳輝, 草野展周ほか: 糖尿病における各種感染症. 日臨 49: 199-206, 1991

**A Case of Actinomycosis of the Sigmoid Colon Associated with
Non-rotation of the Midgut in Adult**

Takuro Saito, Takao Tsuchiya, Michihiko Kogure, Yukio Endo, Hiroyuki Suzuki,
Tsuyoshi Abe, Hitoshi Inoue and Ryouichi Motoki
The First Department of Surgery, Fukushima Medical College

A case of actinomycosis of the sigmoid colon associated with non-rotation of the midgut in adult is reported. A 54-year-old woman was admitted to our hospital complaining of left lower quadrant pain and severe constipation. There was a slightly tender, firm, fixed mass in the left lower quadrant. A barium enema and colonofiberoscopy revealed an illdefined filling lesion and nodular elevated mucosa in the sigmoid colon. A CT scan of that area showed thickening of the colon wall involving its entire circumference. Thus, we were unable to determine whether the lesion was carcinomatous or inflammatory preoperatively. At surgery, we discovered that this case was complicated by a midgut anomaly of the non-rotation type. A large tumor mass was located in the wall of sigmoid colon, and was accompanied by a lesion of the ileocecal area and transverse colon. Resection of the ileocecal lesion via the sigmoid colon and ileostomy were performed. Histologically, the lesion revealed non-specific inflammation with fibrosis. There were many small, scattered abscesses and irregular colonies of actinomyces (sulfur granules) were found within them.

Reprint requests: Takuro Saito First Department of Surgery, Fukushima Medical College
1 Hikarigaoka, Fukushima-shi, 960-12 JAPAN
