

## Idiopathic granulomatous appendicitis の 1 手術例

宮崎医科大学第 2 外科

内野 広文 関屋 亮 西谷 正嘉  
椎葉 淳一 松崎 泰憲 谷川 誠  
鬼塚 敏男 柴田紘一郎 古賀 保範

Idiopathic granulomatous appendicitis と考えられた症例を経験したので報告する。症例は 8 歳の女児。入院約 2 週間前に嘔吐、右下腹部痛が出現した。その後も時折、腹痛が持続していたが、発熱と食欲不振が出現したため、当院を受診した。術前の超音波にて虫垂壁の著明な肥厚と周囲の低エコー領域を認めた。急性虫垂炎および限局性膿瘍の診断にて緊急手術を施行した。開腹すると、混濁した腹水を少量認め、虫垂は 7×3cm と著明に腫大し、周囲に膿瘍を形成していた。他の消化管には異常を認めず、虫垂切除術を施行した。合併症なく術後 13 日目に退院した。病理学的に虫垂壁内に多数の肉芽腫を認め、idiopathic granulomatous appendicitis と診断した。

**Key words:** idiopathic granulomatous appendicitis, appendix, granuloma

### はじめに

虫垂炎は外科医が頻回に遭遇する疾患で、その多くは“acute non-specific appendicitis”<sup>1)</sup>と呼ばれるものである。しかし、症例が蓄積され、病理学的検索がなされるに従い、特異な原因による虫垂炎も報告されるようになってきた。

肉芽腫性虫垂炎は感染性および非感染性の病因によって生じるが、虫垂炎の中ではきわめてまれである。今回、病理学的に虫垂壁内に多数の肉芽腫を認め、idiopathic granulomatous appendicitis (以下、IGA と略記) と考えられた急性虫垂炎の 1 例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

患者は 8 歳の女児。1995 年 2 月初旬、嘔吐および右下腹部痛が出現した。その後も時折腹痛が持続していたが、発熱と食欲不振が増悪し、2 月 14 日当科を受診した。

理学的には体温 39°C で、右下腹部に筋性防御を伴う圧痛を認め、鶏卵大の腫瘤を触知した。

入院時検査所見では白血球 26,700/mm<sup>3</sup> と高値を示したが、そのほかには、生化学検査でも異常を認めなかった。

入院時の超音波では、著明に腫大した虫垂とその近

傍に限局性の低エコー領域を認め (Fig. 1)、また Douglas 窩には少量の腹水を認めた。

限局性膿瘍を伴った急性虫垂炎と診断し、同日緊急手術を施行した。

下腹部横切開にて開腹すると、著明に腫大した虫垂がみられ、小腸間膜との間に膿瘍腔が存在した。回盲部を中心に腸間膜リンパ節の腫脹がみられ、虫垂の尾部は小腸間膜に炎症性に癒着していた。虫垂を完全に切除するため、盲腸壁に一部切り込むようにして、逆行性に虫垂切除術を行った。盲腸壁には炎症性の肥厚はなく、壁縫合の際、粘膜にも異常を認めなかった。そのほかの消化管には炎症所見はなかった。膿瘍腔と Douglas 窩にドレーンを挿入して手術を終了した。

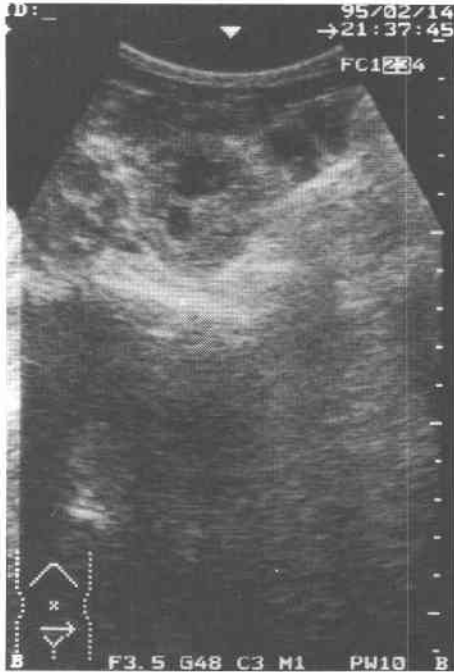
切除標本では、虫垂は肉眼的に著明な壁肥厚を認め、尾部は白色調で、粘膜には顆粒状の変化を認めた (Fig. 2)。

病理学的には類上皮細胞と多核巨細胞を有する非乾酪性肉芽腫が、粘膜下層を中心として多数存在し、一部に壊死を伴っていた。また、全層性にリンパ球を主体とした炎症細胞の浸潤を認め、mucosal fissure が認められた (Fig. 3)。

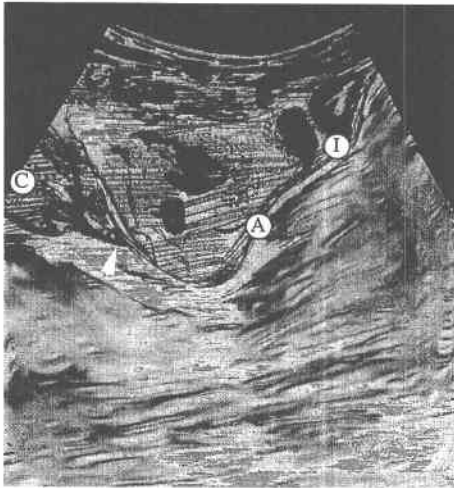
Ziehl-Nielsen 染色では細菌は認めず、また術後早期のエルシニア抗体は正常範囲であった。以上より、肉芽腫をきたす他の疾患を否定し、虫垂以外の消化管に異常所見がなく、かつ、組織学的に多数の肉芽腫を認めたことより IGA と診断した。

<1996年4月3日受理>別刷請求先:内野 広文  
〒889-16 宮崎県宮崎郡清武町大字木原5200 宮崎医  
科大学第 2 外科

**Fig. 1a** Ultrasonography shows mural hypertrophy of the appendix with low echoic space.



**Fig. 1b** The schema of the ultrasonography. A : appendix, C : cecum, I : ileum. A low echoic space shows ascitic fluid (arrow).

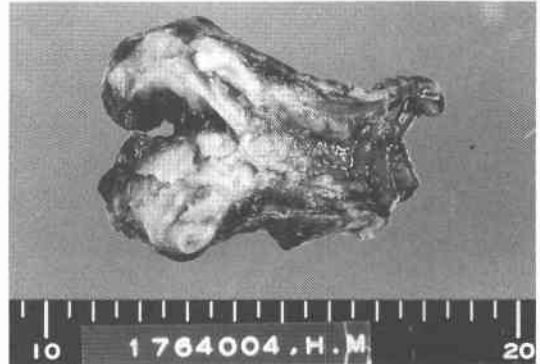


術後13日目に軽快，退院し，約12か月の現在，発熱，下痢や腹痛の徴候なく経過は良好である。

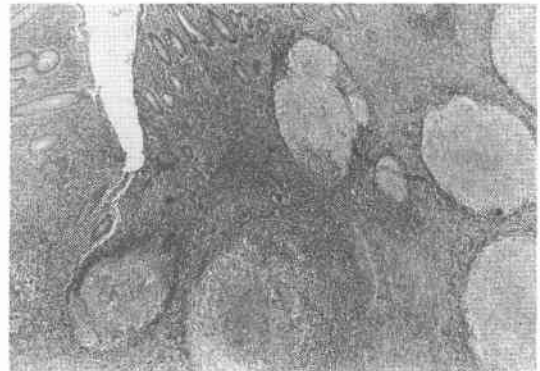
**考 察**

急性虫垂炎は種々の病因により発症するが，その多

**Fig. 2** The resected specimen shows irregular and granular mucosa and whitely mural hypertrophy of the tail is remarkable.



**Fig. 3** Low-power view of the resected specimen reveals multiple granulomas composed of epithelioid cells and multinucleated giant cells mainly in the submucosal layer and mucosal fissure is found (H.E. stain).



くは“acute non-specific appendicitis”<sup>1)</sup>と呼ばれるものである。しかし，ときに特異な原因により発症する虫垂炎もあり，その中でも肉芽腫性虫垂炎はきわめてまれである。

実際，切除された虫垂すべてに対して病理学的検索がなされているとは考えられないため，正確な発生頻度の把握は困難と思われる。

虫垂に肉芽腫を形成する疾患は多い<sup>2)</sup>。Dudley ら<sup>3)</sup>はこれらの疾患を考慮し，IGA の診断基準を次のごとく定義している。

- 1) 寄生虫，真菌および結核菌などの感染を否定すること。
- 2) サルコイドーシスを否定すること。
- 3) 異物を否定すること。

- 4) 虫垂以外の消化管にまったく異常がないこと。
- 5) 組織学的に虫垂壁内に多数の肉芽腫を有するものの。

本症例では、組織学的に虫体は確認されないため寄生虫感染は考えにくく、異物も認めなかった。結核については病理学的にも否定的で、胃液や膿瘍の培養も陰性であった。さらに肉芽腫性虫垂炎を来す疾患としてエルシニア感染症がある。本菌感染患者では血中抗体価の著明な上昇が特徴とされる<sup>4)5)</sup>が、術後早期のエルシニア抗体は正常範囲であり、エルシニア感染症も否定された。

最も問題となるのは、Crohn 病との鑑別であると思われる。Dudley ら<sup>3)</sup>は、IGA と虫垂にも病変を伴う Crohn 病を病理組織学的に比較し、肉芽腫の数の違いを報告している。IGA の場合、短軸方向（一部、長軸方向を含む）の 1 切片中に肉芽腫が平均 19.7 個認められたのに対して、虫垂 Crohn 病の場合、平均 0.3 個しか肉芽腫が認められなかったという。

実際、Crohn 病や他の肉芽腫性疾患を組織学的に鑑別することはしばしば困難であり、本症例でも病理学的には Crohn 病を否定しきれないとのことであった。しかし、短軸方向の 1 切片中に 20 個の肉芽腫が認められ、かつ他の消化管に炎症所見が見られなかったことより、前記のごとく Dudley らの診断基準に従い IGA と診断するのが適当と判断した。稲葉ら<sup>6)</sup>も、虫垂に局限した肉芽腫形成の強い虫垂炎の場合、Crohn 病を否定しきれないとしても、granulomatous appendicitis と診断するのが最も妥当であろうとしている。

本邦での虫垂 Crohn 病の報告例について、組織学的に肉芽腫の個数の記載のあったものを検索したが、多数と報告しているものが多かった<sup>7)~11)</sup>。虫垂 Crohn 病は、いわゆる Crohn 病と比較して skip lesion を呈することが少ないとされているが、これらの中には本症例のように IGA の診断基準を満たすものが含まれていると思われた。

予後に関しては、Dudley ら<sup>3)</sup>によると、IGA 10 例に対する虫垂切除術後早期の合併症は皆無であり、また平均 26 か月の観察期間中、他の消化管に病変の再発をきたした症例は 1 例も無かったという。原発巣に対して、完全に虫垂切除が行えれば予後は良好と思われる。

稿を終えるにあたり、病理学的診断に際してご指導いただいた宮崎医科大学第 2 病理学 鍋島一樹先生、村山寿彦先生に深謝致します。

## 文 献

- 1) Williams GT: The vermiform appendix. Edited by Morson BC. Systemic pathology. vol 3. Third edition. Churchill Livingstone, New York, 198, p292-312
- 2) 宇都宮勝之, 望月英隆: V. 虫垂, 虫垂肉芽腫. 上 銘外喜夫 編. 消化管症候群. 下巻. 日本臨床社, 大阪, 1994, p728-731
- 3) Dudley HT, Dean JT: Idiopathic granulomatous appendicitis, or Crohn's disease of the appendix revisited. Hum Pathol 24: 595-601, 1993
- 4) 丸山 務: Yersinia enterocolitica 感染症. 医のあゆみ 111: 850-853, 1979
- 5) 岡村正造, 大橋信治, 中川 浩ほか: 生検粘膜培養にて診断を確定しえた Yersinia 腸炎の 1 例. 日消病会誌 90: 169-172, 1993
- 6) 稲葉周作, 黒須康彦, 岡村治明ほか: 肉芽腫性虫垂炎の 1 例. 日臨外医会誌 44: 589-592, 1983
- 7) 橋口陽二郎, 横山 正, 森田博義ほか: 虫垂および虫垂入口部附近の盲腸に発生した Crohn 病の 1 例. 胃と腸 25: 1236-1239, 1990
- 8) 有吉秀生, 根木逸郎, 松本憲夫ほか: 虫垂および盲腸に局限した Crohn 病の手術経験. 日臨外医会誌 45: 1632-1636, 1984
- 9) 中川国利, 桃野 哲, 佐々木陽平ほか: 虫垂 Crohn 病の 1 例. 臨外 46: 1283-1286, 1991
- 10) 中川国利, 桃野 哲, 佐々木陽平ほか: 虫垂 Crohn 病の 1 例. 消外 14: 1569-1573, 1991
- 11) 河野義明, 香月武人, 崎浜国治ほか: 直腸 Crohn 病の 1 例と虫垂 Crohn 病の 1 例. 日消外会誌 21: 2192-2195, 1988

### A Case of Idiopathic Granulomatous Appendicitis

Hirofumi Uchino, Ryo Sekiya, Masayoshi Nishitani, Junichi Shiiba,  
Yasunori Matsuzaki, Makoto Tanigawa, Toshio Onitsuka,  
Kouichirou Shibata and Yasunori Koga  
Second Department of Surgery, Miyazaki Medical College

A case of idiopathic granulomatous appendicitis is reported. An 8-year-old girl complained of right lower quadrant pain two weeks before admission. She was admitted to our hospital with loss of appetite and high fever. Preoperative ultrasonographic examination revealed thickening of the appendiceal wall surrounded with a low echoic space. The patient was diagnosed with appendicitis with local abscess, and an appendectomy was performed. A small amount of turbid ascitic fluid was observed in the peritoneal cavity. The appendix was greatly swollen (7 × 3 cm) with local abscess formation. The rest of gastrointestinal tract was normal in appearance. Histopathological examination showed multiple granulomas composed of epithelioid cells and multinucleated giant cells mainly in the submucosal layer of the resected tissue, suggesting idiopathic granulomatous appendicitis. The patient's clinical course was satisfactory and she was discharged on the 13th postoperative day.

**Reprint requests:** Hirofumi Uchino Second Department of Surgery, Miyazaki Medical College  
5200 Kiwara, Kiyotake, Miyazaki, 889-16 JAPAN

---