

急性虫垂炎にて発症した Crohn 病の 1 例

函館中央病院外科¹⁾, 北海道大学腫瘍外科²⁾, 市立札幌病院病理科³⁾

加藤 達哉^{1,2)} 児嶋 哲文¹⁾ 清水 鉄也¹⁾

北城 秀司^{1,2)} 小西 和哉^{1,2)} 山吹 匠^{1,2)}

奥芝 俊一²⁾ 加藤 紘之²⁾ 佐藤 英俊³⁾

症例は23歳の女性。右下腹部痛，発熱を主訴に当科受診。典型的な急性虫垂炎の所見を呈していたため，腹腔鏡下に虫垂切除術を施行した。虫垂の病理診断は Acute on chronic appendicitis と報告された。しかし，術後も微熱，右下腹部痛，CRP 高値の持続がみられ諸検査にて Crohn 病と診断された。その後，上行，横行結腸の狭窄が高度となりイレウス症状も出現したため結腸右半切除を施行し，その切除標本において病理学的に Crohn 病が確認された。虫垂の病理所見を再検討したところ虫垂根部に裂溝に伴う限局性急性炎症像がみられ，その深層に巨細胞を伴う非乾酪性肉芽腫を認めたことから，Crohn 病による急性化膿性炎症と最終診断された。本症例のように急性虫垂炎の原因として Crohn 病によるものがありえるため，鑑別診断の1つとして本症を念頭に置くべきであり，また虫垂切除後の発熱，腹痛，炎症反応の持続がみられた場合は早期に本症を疑った精査が重要である。

はじめに

Crohn 病はあらゆる消化管部位に発生するといわれ，虫垂もその例外ではない。一般に盲腸や回腸末端型 Crohn 病の約24～71%に病理組織学的に虫垂に Crohn 病の炎症が波及していると言われている¹⁾⁻³⁾。しかし，活動型 Crohn 病で虫垂に急性炎症を来たすものはまれである⁴⁾。今回，われわれはそれまで無症状であった盲腸を中心とした広範囲にわたる Crohn 病が，典型的な急性虫垂炎として発症した1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：23歳，女性

主訴：右下腹部痛，発熱，下痢

家族歴：特記すべき事なし。

既往歴：特記すべき事なし。

現病歴：生来健康であったが，平成11年6月19日より突然の右下腹部痛，39度台の発熱が出現したため2日後に当科を受診した。

初診時現症：右下腹部に圧痛 (McBurney)，筋性防御を認め，Blumberg sign 陽性であった。

入院時検査所見：血液検査では白血球17,500/ mm^3 ，CRP 20.2mg/dl，赤沈69mm/1hr と高度の炎症

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	17,500 / mm^3	ALP	269 IU/L
RBC	474 × 10 ⁶ / mm^3	LDH	122 IU/L
Hb	10.5 g/dl	AMY	24 IU/L
Ht	35.0 %	T-Chol.	102 mg/dL
Plt	52.2 × 10 ⁴ / mm^3	BUN	8.4 mg/dL
TP	8.1 g/dL	Cr	0.5 mg/dL
ALB	3.5 g/dL	Na	138 mEq/L
T. bil	0.6 mg/dL	K	4.9 mEq/L
GOT	10 IU/L	Cl	101 mEq/L
GPT	8 IU/L	CRP	20.2 mg/dL
γ -GTP	25 IU/L	ESR	69 mm/1hr

反応を認めた (Table 1)。

腹部超音波検査：虫垂は長さ3.5cm，径1.1cm と腫大を認めた (Fig. 1)。また，盲腸腸管壁は浮腫状に肥厚していた。

これらより急性虫垂炎を疑い，同日緊急手術を施行した。腹腔鏡下に腹腔内を観察すると虫垂は棍棒状に腫大し，盲腸は充血し浮腫状であった。ダグラス窩には腹水を認めたが，他の腸管壁には著変を認めなかった。以上より急性虫垂炎と診断し腹腔鏡下虫垂切除術を施行した。

虫垂の病理学的所見として虫垂の筋層内や漿膜下にリンパ濾胞の形成，慢性の炎症反応が認められた。また，粘膜では正常粘膜の間に一部びらん，潰瘍が介在

< 2000年4月26日受理 > 刷請求先：加藤 達哉
〒060 8638 札幌市北区北15条西7 北海道大学医学
部腫瘍外科

Fig. 1 Ultrasonography showed an enlarged appendix, 3.5cm in length and 1.1cm in diameter.

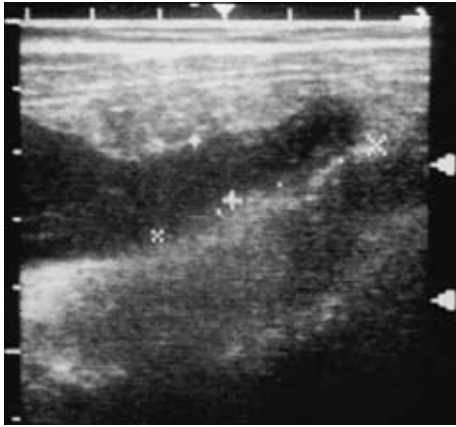


Fig. 2 Abdominal CT-scan revealed wall thickening of the cecum (arrow)

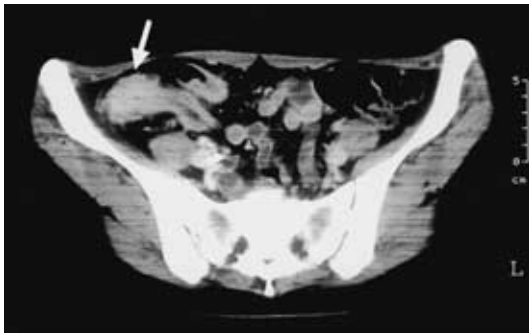


Fig. 3 Colonoscopic findings showed cobblestone-like polypoid lesion in the transverse colon.

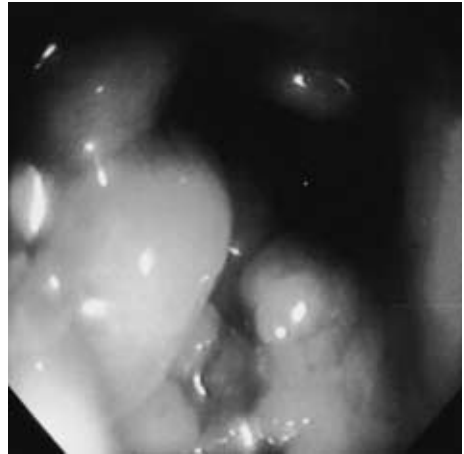


Fig. 4 Gastrografen enema showed stricture in the transverse colon (arrow), eccentric distensibilities and serration in the ascending colon (arrowheads) and severe narrowing in the cecum.



し、それに伴う好中球浸潤を認め、病理診断は acute on chronic appendicitis と報告された。

術後 4 日間にわたって 39 台の発熱を認めたが、次第に下降し退院となった。しかしその後も 37 台の微熱および右下腹部痛が持続した。また、CRP は 7.8~9.0 mg/dl と炎症反応の持続がみられたため再入院となり虫垂切除後 1 か月を経て諸検査を施行した。

CT 所見：横行結腸、上行結腸、盲腸壁の肥厚と周囲の脂肪組織内へのけば立ち像を認めた (Fig. 2)。

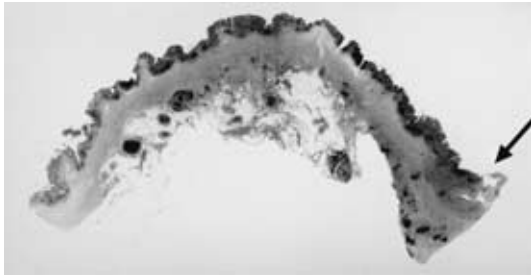
大腸内視鏡所見：横行結腸に cobblestone appearance を認めた (Fig. 3)。

ガストログラフィン注腸 X 線検査所見：横行結腸、上行結腸に非連続性に狭窄像を認め、また盲腸の著明な狭小化を認めた。盲腸～上行結腸外側には“ けば立

ち像 ” もみられた (Fig. 4)。

これらの所見から Crohn 病と診断し、プレドニンを 50mg/day より開始したところ CRP は徐々に下降し、陰性化した。しかし、その後、イレウス症状が出現したため再度ガストログラフィン注腸 X 線検査を施行

Fig. 5 Resected specimen of the appendix. A marked submucosal edematous and fibrous thickening of appendiceal wall. Arrow shows the appendix base.



したところ、上行結腸、横行結腸の狭窄像が高度なため、平成11年9月27日結腸右半切除術を施行した。

切除標本肉眼所見：横行結腸～盲腸に縦走潰瘍，cobblestone appearance が散在性に認められた。

病理組織学的所見：全体的にはUI-IIの潰瘍瘢痕が主体であり、一部に粘膜下層より漿膜にいたるリンパ球の集簇性浸潤、ラングハンス型巨細胞を伴った非乾酪性肉芽腫が認められ、Crohn病の所見であった。そこで改めて虫垂の病理所見を検討した。

虫垂切除標本所見(ルーペ像)：全体的に虫垂は腫大

し、壁は線維性に肥厚し、虫垂根部にさらに強い肥厚を認めた (Fig. 5)。

虫垂の病理組織学的所見：虫垂根部の壁の肥厚した部分に一致して筋層に達する裂溝 (fissuring ulcer) を認め、それに伴う限局性の急性炎症像 (好中球の著明な浸潤と膿瘍の形成) がみられた (Fig. 6a)。筋層は炎症細胞浸潤によりほとんど破壊されており、さらにその深層の漿膜側にラングハンス型巨細胞を伴う非乾酪性肉芽腫を認めた (Fig. 6b)。

術後瘻孔形成などの合併症を認めず、また再手術後4か月を経た現在も他の消化管部位に再発を認めていない。

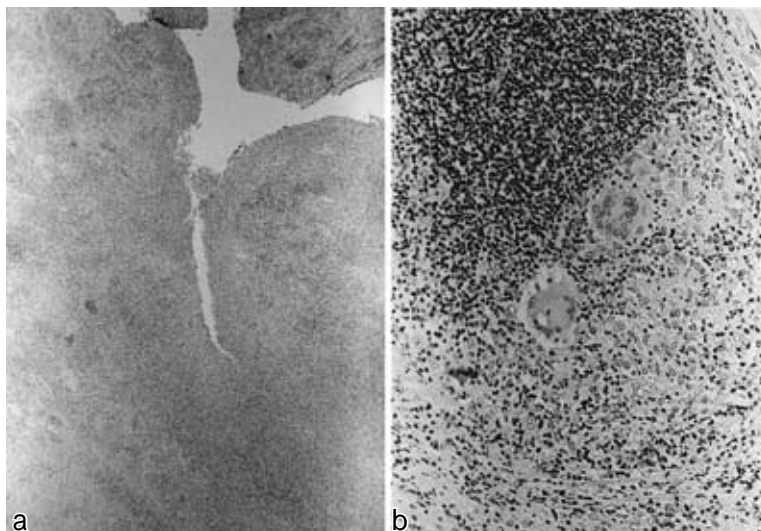
考 察

Crohn病は消化管のあらゆる部位に発生するが、一般に虫垂にCrohn病がみられる場合、2つのタイプに分けられる。1つは虫垂に原発する appendiceal Crohn's disease であり、もう1つは盲腸や回腸末端型のCrohn病で炎症が虫垂まで波及する appendiceal involvement of Crohn's disease である。

Appendiceal Crohn's disease の報告例は少なく、Crohn病の多いとされる欧米でもこれまでに156例が報告されているに過ぎない⁵⁾、本邦でもこれまでに虫垂Crohn病として14例の報告⁶⁾⁻¹⁹⁾をみるが、その特徴

Fig. 6 Microscopic findings.

- a) Fissuring ulcer surrounded by abscess and acute inflammation in the appendix base (Hematoxylin and eosin stain, $\times 10$)
 b) A non caseous epithelioid cell granuloma with Langhans' giant cell. (Hematoxylin and eosin stain, $\times 50$)



として(1)急性虫垂炎様の症状を呈する(2)病変は主に虫垂に限局する(3)他の消化管部位に再発することはまれであるなどの特徴が挙げられる。しかし、報告例を詳細に検討してみると盲腸にも病変を認めるものが7例あり、これらは盲腸虫垂限局型 Crohn 病として報告されている^{6)~19)}。また、欧米の報告をみると appendiceal Crohn's disease は主に虫垂に限局し、再発もまれであるとされているが、盲腸や回腸末端まで炎症が波及しているものが約20%あり²⁰⁾、また他の消化管部位に再発するものも7~14%みられる^{1)~11)}。これらの報告にみるごとく虫垂原発の Crohn 病の定義はいまだ定かではないのが現状である。また、病因論をふまえて1981年、Payan ら²²⁾は虫垂に肉芽腫をきたす疾患として細菌学的、臨床学的証拠を認めないものを granulomatous appendicitis と命名した。さらに1993年、Dudley らは²³⁾appendiceal Crohn's disease では appendiceal involvement of Crohn's disease に対して1切片当たりの granuloma の個数が圧倒的に多いことより、これらを Crohn 病とは全く別個の範疇にすべきだとしている。しかし、この提唱も病因が確定しておらず、今後さらなる検討が必要である。

一方、appendiceal involvement of Crohn's disease において盲腸や回腸末端の Crohn 病が虫垂に波及する頻度は24~71%とされている^{1)~3)}。しかし、活動型 Crohn 病で虫垂に急性炎症が初発するものはまれである⁴⁾。今回、我々が経験した症例は虫垂根部に筋層に至る深い裂溝とその周囲の限局性急性炎症が認められ、さらにその深層のリンパ装置に巨細胞を伴う非乾酪性肉芽腫を認めたことより虫垂根部の急性化膿性炎症は Crohn 病によるものと考えられた。本症例は大腸型 Crohn 病と考えられるが、それまで全く症状がなく、また発症が急激で、典型的な急性虫垂炎の症状を呈した。このため、通常の急性虫垂炎と診断し手術を施行したが、虫垂切除標本の入念な病理学的検査を行えばより早い時期での診断が可能であったと反省させられた。諸家の報告によると急性虫垂炎として手術された症例のうち Crohn 病を原因としたものは0.128~0.4%であるとされている^{24)~25)}。まれではあるが、Crohn 病が急性虫垂炎の原因疾患となりうるため、虫垂切除後の病理標本の慎重な検討が必要である。また、術後に原因を同定できない発熱、腹痛、炎症反応の持続がみられた場合、本症を念頭におき精査を進める必要があるものと思われた。

本症例は初発症状が虫垂に出現した Crohn 病で、そ

の急性期に腹腔鏡で検索を行えた貴重な症例と考えられるが、盲腸壁が充血し浮腫状である以外に特異性を見出すことはできなかった。これまでのところ Crohn 病の腹腔鏡的診断の特徴として creeping mesenteric fat などが指摘されているが、その報告は少ない^{26)~27)}。今後、経験例の蓄積により本症に特異的な所見が集積され、診断と同時に腹腔鏡下の治療が施行されうるものと期待される。

文 献

- 1) Yang SS, Gibson P, McCaughey RS et al : Primary Crohn's disease of appendix : Report of 14 cases and review of the literature. *Ann Surg* 189 : 334-339, 1979
- 2) Larsen E, Axelsson C, Johansen A : The pathology of appendix in morbus Crohn and ulcerative colitis. *Acta Pathol Microbiol Scand* 212(suppl) : 161-165, 1970
- 3) Kahn E, Markowitz J, Daum F : The appendix in inflammatory bowel disease in children. *Mod Pathol* 5 : 380-383, 1992
- 4) Fonkalsrud EW, Ament ME, Fleisher D : Management of the appendix in young patients with Crohn's disease. *Arch Surg* 117 : 11-14, 1982
- 5) Richards ML, Aberger FJ, Landercasper J : Granulomatous appendicitis : Crohn's disease : atypical Crohn's, or not Crohn's at all?. *J Am Coll Surg* 185 : 13-17, 1997
- 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. *日臨外医学会誌* 44 : 589-592, 1983
- 7) 高見正敏, 花田正人, 木村正治ほか : 虫垂および盲腸に限局した Crohn 病の1例. *胃と腸* 18 : 1303-1310, 1983
- 8) 有吉秀夫, 根本逸郎, 松本憲夫ほか : 虫垂および盲腸に限局した Crohn 病の手術経験. *日臨外医学会誌* 45 : 1632-1636, 1984
- 9) 中島俊雄, 富永静雄, 杉本友照ほか : 急性腹膜炎を呈した虫垂 Crohn 病の1例. *函館医誌* 9 : 107-112, 1985
- 10) 三宅哲也, 三木雄雄, 藤岡正樹ほか : Crohn 病の組織像を呈した虫垂肉芽腫の1例. *外科* 48 : 1526-1529, 1986
- 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
- 12) 橋口陽二郎, 横山 正, 森田博義ほか : 虫垂および虫垂入口部付近の盲腸に発生した Crohn 病の1例. *胃と腸* 25 : 1236-1239, 1990
- 13) 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
- 14) 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
- 15) 今村達也, 八尾恒良, 古賀東一郎ほか : 虫垂 Crohn

- 病の 1 例と本邦報告例の検討 .胃と腸 30 : 589
594, 1995
- 16) 森田敏弘, 山内利夫, 熊沢伊和生ほか : 虫垂 Crohn 病の 1 例 . 日消外会誌 31 : 2397-2401, 1998
- 17) Masuo K, Yasui A, Nishida Y et al : A case of Crohn 's disease limited to the appendix, showing a portentous ultrasonographic finding. J Gastroenterol 29 : 76-79, 1994
- 18) Shikuwa S, Senjyu M, Haraguti M et al : A case report of Crohn 's disease confined to the appendix. Dig Endosc 8 : 315-320, 1996
- 19) Morita H, Murakami H, Kawai S et al : Appendiceal fistulae formation as a complication of primary Crohn 's disease prior to surgical management : report of a case. Surg Today 26 : 340-344, 1996
- 20) Agha FP, Ghahremani GG, Panella JS et al : Appendicitis as the initial manifestation of Crohn 's disease : radiologic features and prognosis. Am J Radiol 149 : 515-518, 1987
- 21) Ariel I, Vinograd I, Hershlag A et al : Crohn 's disease isolated to the appendix : truths and fallacies. Hum Pathol 17 : 1116-1121, 1986
- 22) Payan HM, Gilbert EF, Hafez R : Granulomatous appendicitis. Dis Colon Rectum 24 : 432-436, 1981
- 23) Dudley TH Jr, Dean PJ : Idiopathic granulomatous appendicitis, or Crohn 's disease of the appendix revisited. Hum Pathol 24 : 595-601, 1993
- 24) Collins DC : 71,000 human appendix specimens : a final report, summarizing a 40 year study. Am J Protol 14 : 365-381, 1963
- 25) Bak M, Andersen JC : Crohn 's disease limited to the vermiform appendix. Acta Chir Scand 153 : 441-446, 1987
- 26) Bosch X : Laparoscopy to correctly diagnose and treat Crohn 's disease of the ileum. J Laparoendosc Adv Surg Tech 8 : 95-98, 1998
- 27) Singh K, Prasad A, Saunders JH et al : Laparoscopy in the diagnosis and management of Crohn 's disease. J Laparoendosc Adv Surg Tech 8 : 39-46, 1998

Report of a Case with Crohn 's Disease Presenting as Acute Appendicitis

Tatsuya Kato^{1,2}, Tetsufumi Kojima¹, Tetsuya Shimizu¹, Suuji Kitashiro^{1,2},
Kazuya Konishi^{2,3}, Takumi Yamabuki^{1,2}, Shunichi Okushiba²
Hiroyuki Kato^{2,3} and Hidetoshi Sato³)

¹Department of Surgery, Hakodate Central General Hospital

²Division of Cancer Medicine, Cancer Medicine, Surgical Oncology,
Hokkaido University Graduate School of Medicine

³Department of Pathology, Sapporo City Hospital

A 23-year-old woman, complaining of right lower abdominal pain and fever, was diagnosed as having typical acute appendicitis, and treated by laparoscopic appendectomy. The pathological diagnosis was acute on chronic appendicitis. However, slight fever, right lower abdominal pain, and elevation of serum CRP persisted postoperatively, and Crohn 's disease was diagnosed based on the results of further investigation. Subsequently, because strictures of the ascending and transverse colon had been aggravated and ileac symptom was appeared, right hemicolectomy was performed and histopathological study of the resected specimen showed typical Crohn 's disease features. A retrospective review of the appendiceal specimen revealed localized acute inflammation associated with a fissuring ulcer at the base of the appendix, and a non-caseous epithelioid cell granuloma with Langhans' giant cells in its deeper layer. Therefore, the appendicitis was ultimately attributed to Crohn 's disease. In the differential diagnosis of the causes of acute appendicitis, Crohn 's disease should be considered as in this case. Furthermore, investigation of suspected Crohn 's disease is important in patients with persistent fever, abdominal pain, and inflammatory reactions after appendectomy.

Key words : Crohn 's disease, acute appendicitis, laparoscopic appendectomy

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 1529-1533, 2000]

Reprint requests : Tatsuya Kato Hokkaido University Graduate School of Medicine, Division of Cancer Medicine, Cancer Medicine, Surgical Oncology
N15W7, Kita-ku, Sapporo, 060-8638 JAPAN