

虫垂 Crohn 病の 1 例

神戸赤十字病院外科, 岡山市立せのお病院外科*

野中 泰幸 津下 宏* 湯村 正仁

虫垂 Crohn 病はきわめてまれで, 本邦では14例が報告されているにすぎない. 今回, われわれは虫垂 Crohn 病の 1 例を経験したので報告する. 症例は42歳の男性. 腹痛を主訴に来院. 右下腹部に強い圧痛と筋性防御, Blumberg 徴候を認め, 急性虫垂炎の診断にて緊急手術を行った. 虫垂は炎症性に著しく腫大しており, 後腹膜に癒着し大網に被われていた. 盲腸および終末回腸には異常はみられず, 虫垂切除術を施行した. 切除標本では, 虫垂壁は著しく肥厚しており, 粘膜面は顆粒状を呈していた. 病理組織学的には全層にわたりリンパ球集簇巣と非乾酪性類上皮細胞肉芽腫を認め, 虫垂 Crohn 病と診断された. 術後内視鏡検査にて虫垂開口部周囲盲腸粘膜に結節状隆起病変の集簇が認められた. 同部の生検では Crohn 病を示唆する所見はみられなかった. 術後 6 か月現在, 慎重に経過観察中である.

はじめに

虫垂・盲腸に局限した Crohn 病はきわめてまれで, われわれが検索しえたかぎりでは本邦において14例が報告されているにすぎない. 今回, われわれは右下腹部痛にて急性発症した虫垂 Crohn 病の 1 例を経験した. 自験例を含めた本邦報告例15例につき文献的考察を加えて報告する.

症 例

症例: 42歳, 男性

主訴: 右下腹部痛

既往歴: 平成11年11月, 左顎下腺唾石症にて手術.

家族歴: 特記すべきことなし.

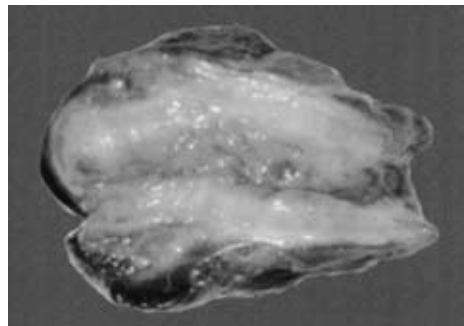
現病歴: 平成12年5月5日, 夜より右下腹部痛が出現. 腹痛が増強するため5月6日, 近医受診, 同日急性虫垂炎の疑いにて当科紹介となった.

入院時現症: 身長172cm, 体重83kg, 眼球眼瞼結膜に貧血, 黄疸認めず. 血圧144/86mmHg, 脈拍74/分整, 体温36.8. 呼吸音清. 腹部は全体的に肥満あり, 右下腹部に筋性防御を伴う圧痛あり, Blumberg 徴候を認めた.

入院時検査所見: 白血球 $13,200/\text{mm}^3$, 赤血球 $494/\text{mm}^3$, 血色素 $16.4\text{g}/\text{dl}$, ヘマトクリット 46.1% , 血小板 $33.3\text{万}/\text{mm}^3$.

腹部単純 X 線検査所見: 異常ガス像は認めず.

Fig. 1 The resected specimen showed markedly thickened wall and cobblestone-like granular change in the mucosa.



胸部単純 X 線検査所見: 肺野, 縦隔に異常陰影認めず.

以上より急性虫垂炎と診断し, 平成12年5月6日, 緊急開腹手術を施行した.

手術所見: 腰椎麻酔下に交差切開にて開腹した. 腹水は認めなかった. 虫垂は後腹膜に癒着し大網に被われていたため, 剥離露出したところ, 肥厚した虫垂間膜と一塊となった炎症性に著しく腫大した虫垂が認められた. 虫垂根部にて二重結紮後切離し, 虫垂切除術を行った. 盲腸および回腸末端には異常はみられなかった.

切除標本肉眼所見: 虫垂内部に少量の膿を認めた. 粘膜面に発赤なく, 全体的に顆粒状を呈しており, 筋

< 2001年1月31日受理 > 別刷請求先: 野中 泰幸
〒650 0011 神戸市中央区下山手通5 6 22 神戸赤十字病院外科

層はびまん性に著しく肥厚していた。漿膜面には全体的に強い発赤を認めた (Fig. 1)。

病理組織学的検査所見：粘膜から漿膜下層にかけて、全層性にリンパ球集簇巣と多数の非乾酪性類上皮細胞肉芽腫を認めた (Fig. 2) 抗酸菌染色は陰性であった。

ツベルクリン皮内反応：20mm x 22mm の発赤を認めた。

大腸内視鏡検査所見：術後 2 か月後の内視鏡検査では、虫垂開口部周囲盲腸粘膜に発赤を有する結節状隆起の集簇がみられた (Fig. 3)。回盲弁および挿入可能

であった終末回腸粘膜には異常はみられなかった。盲腸隆起病変部の生検では慢性炎症所見を認めたが、肉芽腫などの特異的所見はみられなかった。また、抗酸菌染色は陰性であった。

小腸造影検査所見：小腸の拡張、狭窄は認めず、終末回腸まで明瞭に造影された。

上部消化管内視鏡検査所見：十二指腸球部に軽度粘膜発赤を有する十二指腸炎を認める以外、食道、胃粘膜は正常であり、生検で Crohn 病を疑う肉芽腫様病変はみられなかった。

胸部 CT 検査所見：肺野、縦隔に異常陰影はみられなかった。

以上の所見より虫垂 Crohn 病と診断した。

術後経過：術後 6 か月現在、腹部症状、炎症所見認めず、外来にて経過観察中である。

考 察

虫垂 Crohn 病はまれな疾患であり、1953年の Meyerding ら¹⁾の報告に始まる。以後報告例が散見され²⁾⁻⁶⁾、1988年には Vincent ら⁷⁾が自験例を加えた75例につき集計報告している。本邦においては極めてまれであり、われわれの検索しえた限りでは、虫垂に主病変がみられた虫垂・盲腸限局型 Crohn 病は、わずかに14例⁸⁾⁻²¹⁾が報告されているにすぎない。今回、自験例を含めた15例につき検討を加えた (Table 1)。

主訴はほとんどが右下腹部痛であり、術前診断は急性虫垂炎が15例中9例と過半数を占め、他は回盲部腫瘍として手術施行されたものが多く、術前に Crohn

Fig. 2 Noncaseating granulomas and lymphoid aggregation were observed in the muscle layer (HE : x25)

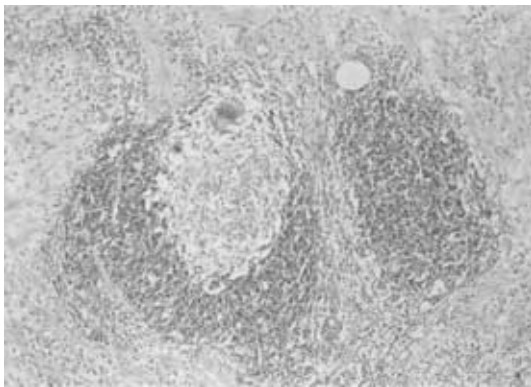


Fig. 3 Colonoscopic examination revealed a polypoid lesion in the cecal mucosa, around the orifice of the appendix.



Table 1 Crohn's disease of the appendix in the Japanese literature

No	Author (Year)	Age	Sex	Chief complaint	Preoperative diagnosis	Macroscopic findings of the appendix	Elevated lesion of the cecum	Operative procedure	Prognosis (Disease free interval)
1	Inaba ⁶⁾ (1983)	28	F	RLQ pain	Acute appendicitis	Wall thickness	None	Appendectomy	NR (2 years)
2	Takami ⁸⁾ (1983)	71	F	RLQ tumor	Ileocecal tumor	Transmural fibrous wall thickness	Cobblestone-like polypoid lesion	Rt.hemicolectomy	NR (6 months)
3	Ariyoshi ¹⁰⁾ (1984)	27	F	RLQ pain	Cecal malignancy	Wall thickness	Granular change	Ileocecal resection	NR (3 years)
4	Miyake ¹¹⁾ (1986)	21	F	RLQ pain	Cecal tumor	Inflammatory wall thickness	None	Ileocecal resection	NR (—)
5	Kono ¹²⁾ (1988)	27	F	RLQ pain	Acute appendicitis	Wall thickness	(—)	Appendectomy	NR (—)
6	Hashiguchi ¹³⁾ (1990)	59	M	RLQ pain	Appendicular tumor	Wall thickness	Inflammatory polyposis	Ileocecal resection	NR (—)
7	Nakagawa ¹⁴⁾ (1991)	20	M	RLQ pain	Acute appendicitis	Wall thickness Mucosa erosion	Granular lesion	Ileocecal resection	NR (6 months)
8	Nakagawa ¹⁵⁾ (1991)	30	F	RLQ pain	Acute appendicitis	Wall thickness Mucosa erosion,ulcer	Polypoid lesion	Appendectomy	NR (3 months)
9	Masuo ¹⁶⁾ (1994)	17	M	RLQ pain	Acute appendicitis	Wall thickness	None	Appendectomy	NR (3 years)
10	Imamura ¹⁷⁾ (1995)	43	M	RLQ pain	Acute appendicitis	Wall thickness	None	Appendectomy Ileocecal resection*)	NR (9 years)
11	Shikuwa ¹⁸⁾ (1996)	36	M	RLQ pain	Crohn's disease	Fibrous wall thickness	Polypoid lesion	Ileocecal resection	(—) (—)
12	Kobayashi ¹⁹⁾ (1997)	53	M	RLQ pain	Crohn's disease	tumor	Cobblestone-like polypoid lesion	Ileocecal resection	NR (10 months)
13	Morita ²⁰⁾ (1998)	20	M	RLQ pain	Acute appendicitis	Transmural wall thickness	None	Ileocecal resection	NR (2 years)
14	Miyaguchi ²¹⁾ (1999)	17	M	RLQ pain	Acute appendicitis	Wall thickness, necrosis,perforation	Elevated lesion	Appendectomy Ileocecal resection**)	NR (2 years)
15	Our case (2000)	42	M	RLQ pain	Acute appendicitis	Transmural wall thickness	Polypoid lesion	Appendectomy	NR (6 months)

RLQ : Right lower quadrant (—) : No description NR : No recurrence

*) Ileocecal resection was performed due to fistulization at 2 months later after appendectomy

***) Ileocecal resection was performed due to recurrence of Crohn's disease at 5 months later after appendectomy

病と診断されたものは疑診例も含め、わずか 2 例にすぎない¹⁸⁾¹⁹⁾。その理由の一つに、自験例を含め右下腹部痛で発症し、白血球増多を伴う急性発症型が 8 例^{8)14)~17)20)21)}と多く、腹部症状、炎症所見より急性虫垂炎との鑑別が困難であり、内視鏡検査などの術前検査が十分になされないことが考えられる。術前に Crohn 病と診断された症例は、比較的慢性経過した右下腹部痛のため、内視鏡検査が施行され、盲腸の結節状隆起からの生検より非乾酪性肉芽腫が得られた症例¹⁸⁾である。Vincent ら⁷⁾も虫垂 Crohn 病の主訴としては右下腹部痛が 67% と最も多く、悪心・嘔吐 26%、下痢 6% などであり、その 64% が急性虫垂炎の術前診断であったと報告している。

手術術式についてみると、欧米同様³⁾⁵⁾⁷⁾、虫垂切除術と回盲部切除術がほとんどで、術中、回盲部悪性腫瘍を否定しきれない症例では右半結腸切除術が行われている。最終的にはこの 1 例を除き、14 例中 9 例に回盲部切除術、5 例に虫垂切除術が行われている。

虫垂 Crohn 病の予後は、再燃・再発率の高い他の部位の Crohn 病と異なり良好である。欧米では回盲部 Crohn 病の虫垂切除後にはその 15~20% に瘻孔形成がみられる⁷⁾のに対し、虫垂 Crohn 病では瘻孔形成を認めないとする報告が多く³⁾⁵⁾⁷⁾、他部位への再発率も約 8%~14% と低率である^{5)~7)}。再発例²⁾⁵⁾²²⁾は術後数年後の上行結腸や終末回腸などからのものが報告されている。本邦では 15 例中、2 例(13%)に大腸内視鏡検査などにより再発が疑われ、再手術がなされている。その術後経過よりみて、遺残盲腸病変¹⁷⁾や虫垂切除断端²¹⁾からの再燃の可能性が高く、回盲部切除術後の他部位への再発はみられていない。

虫垂 Crohn 病と鑑別すべき疾患として結核、エルシニア感染症、サルコイドーシス、アクチノマイコーシス、parasitic infestation、異物反応がある。自験例では、抗酸菌染色、抗エルシニア抗体ともに陰性であり、また胸部単純 X 線・CT 検査上も肺野・縦隔に異常認めず、サルコイドーシスも否定的であった。虫垂 Crohn

病の特徴として, Yangら⁵⁾は1) transmural fibrosis, 2) muscular hypertrophy, 3) chronic inflammationを伴う著しい腫大と高頻度にみられる非乾酪性肉芽腫の存在を挙げている. 自験例でも, 全層性壁肥厚と粘膜から漿膜下層にかけてのリンパ球集簇巣と多数の非乾酪性類上皮細胞肉芽腫を認めており, また Lindhagenら⁶⁾が報告している mucosa cobblestone appearance と似た虫垂の顆粒状粘膜がみられた. 以上より, 自験例は虫垂 Crohn 病と考えられた.

虫垂 Crohn 病では虫垂入口部周囲盲腸粘膜に結節状, 顆粒状の隆起性病変の集簇を認めるとする報告が多くみられ^{9) 10) 13) - 15) 18) 19) 21)}, 特徴の一つとされている. その成因については明らかにされていないが, 高見ら⁹⁾は虫垂病変の周局炎による盲腸壁の線維化の影響を挙げている. 自験例でも虫垂入口部周囲盲腸粘膜に結節状隆起の集簇を認めたが, 同部の生検では慢性炎症像のみで, 肉芽腫など Crohn 病を示唆する所見はみられなかった. 虫垂切除後の盲腸隆起性病変に対して保存的に経過観察を行っている症例は自験例を含めて2例である¹⁵⁾. 自験例では術後6か月現在, 盲腸隆起性病変に起因すると考えられる症状, 炎症所見はみえていないが, 遺残病変の可能性もあるため今後長期にわたり慎重な経過観察が必要であると考えられた.

文 献

- 1) Meyerding EV, Bertram HF : Nonspecific granulomatous inflammation (Crohn 's disease) of the appendix : A case report. *Surgery* 34 : 891 - 894, 1953
- 2) Ewen SWB, Anderson J, Galloway JMD et al : Crohn 's disease initially confined to the appendix. *Gastroenterology* 60 : 853 - 857, 1971
- 3) Green GI, Broadrick GL, Collins JL : Crohn 's disease of the appendix presenting as acute appendicitis. *Am J Gastroenterol* 65 : 74 - 77, 1976
- 4) Nivatvongs S : Crohn 's disease of the appendix : Report of a case and review of the literature. *Dis Colon Rectum* 21 : 361 - 363, 1978
- 5) Yang SS, Gibson P, McCaughey RS et al : Primary Crohn 's disease of the appendix : Report of 14 cases and review of the literature. *Ann Surg* 189 : 334 - 339, 1979
- 6) Lindhagen T, Ekelund G, Leandroer L et al : Crohn 's disease confined to the appendix. *Dis Co-*

- lon Rectum 25 : 805 - 808, 1982
- 7) Vincent WV, George S, Mounir A et al : Isolated Crohn 's disease of the appendix : Two case reports and a review of the literature. *Arch Surg* 123 : 85 - 87, 1988
- 8) 稲葉周作, 黒須康彦, 岡村治明ほか : 肉芽腫性虫垂炎の1例. *日臨外会誌* 44 : 589 - 592, 1983
- 9) 高見元敏, 花田正人, 木村正治ほか : 虫垂および盲腸に局限した Crohn 病の1例. *胃と腸* 18 : 1303 - 1310, 1983
- 10) 有吉秀生, 根本逸郎, 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. *日臨外会誌* 45 : 1632 - 1636, 1984
- 11) 三宅哲也, 三木誓雄, 藤岡正樹ほか : Crohn 病の組織像を示した虫垂肉芽腫の1例. *外科* 48 : 1526 - 1529, 1986
- 12) 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
- 13) 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
- 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) 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
- 16) 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
- 17) 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
- 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) 小林正明, 堀高史郎, 上原一浩ほか : 虫垂開口部に敷石像を認めた盲腸虫垂型クローン病の1例. *Endosc Forum digest dis* 13 : 185 - 189, 1997
- 20) 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
- 21) 宮口直之, 福田和馬, 西 英行ほか : 虫垂 Crohn 病の1例. *日臨外会誌* 60 : 1313 - 1316, 1999
- 22) Hall JH, Hellier MD : Crohn 's disease of the appendix presenting as acute appendicitis. *Br J Surg* 56 : 390 - 392, 1969

A Case of Crohn 's Disease of the Appendix

Yasuyuki Nonaka, Hiromu Tsuge* and Masahito Yumura

Department of Surgery, Kobe Red Cross Hospital

*Department of Surgery, Okayama Municipal Hospital Seno

Crohn 's disease of the appendix is rare, with only 14 cases reported in Japan, to our knowledge. A 42-year-old man was admitted due to severe pain with tenderness in the right lower quadrant, muscle guarding, and rebound tenderness. Emergency laparotomy was conducted under a diagnosis of acute appendicitis with peritonitis. During the procedure, the appendix was found to be inflamed, markedly enlarged, and densely adherent to the retroperitoneum, wrapped in omentum. No other lesions were noted in the cecum or terminal ileum. After appendectomy, the resected specimen showed a granular lesion in the mucosa. The walls of the appendix were markedly thickened. Histologically, noncaseating granulomas and lymphoid aggregation were observed with transmural inflammation indicative of Crohn 's disease. Postoperative colonoscopic examination revealed a polypoid lesion in the cecal mucosa near the orifice of the appendix. The specimen from the polypoid lesion revealed lymphocytes infiltration, but no evidence of Crohn 's disease. The patient has been followed up carefully in the 6 months since surgery.

Key words : Crohn 's disease, appendix

[Jpn J Gastroenterol Surg 34 : 500 504, 2001]

Reprint requests : Yasuyuki Nonaka Department of Surgery, Kobe Red Cross Hospital
5 6 22 Shimoyamatedori, Chuo-ku, Kobe, 650 0011 JAPAN
