

## 横行結腸穿孔を来した SLE の 1 例

三重大学第 2 外科

井上 靖浩 湊 栄治 山本 隆行  
三木 誓雄 楠 正人

症例は 24 歳の女性。平成 5 年, systemic lupus erythematosus(以下, SLE と略記)と診断された。平成 11 年 8 月より, ループス腹膜炎の診断で内科入院, ステロイドパルス療法施されていたが病状は改善せず, 消化管穿孔を来したため, 緊急手術を施行した。手術所見では横行結腸に膿苔の付着する炎症性変化が見られ, 同部に多発する小穿孔を認めた, 壊死部を切除し, 人工肛門造設術を行ったが, 敗血症から離脱できず, 術後約 1 か月で死亡した。SLE に伴う消化管穿孔は比較的まれであるが, 予後不良であり, 嚴重な経過観察と病状の変化に合わせた適切な治療選択が大切と考えられた。

### はじめに

SLE の血管病変による消化器症状は従来より報告されており, 時として消化管穿孔を来すことも知られている。しかしながら, SLE 自体活動期であることが多く, その予後は不良である。今回, 我々は SLE にてステロイドパルス療法中に横行結腸穿孔を来した症例を経験したので報告する。

### 症 例

患者: 24 歳, 女性

主訴: 腹痛

既往歴: 特記事項なし。

家族歴: 紫斑病(従姉妹)

現病歴: 平成 5 年 6 月, SLE と診断され, 平成 9 年 2 月にはループス腎炎, シェーグレン症候群の診断で, ステロイドパルス療法が施行されており, 以後プレドニン 15mg/day 内服による加療を受けている。

平成 11 年 8 月 31 日腹痛のため他院入院, ループス腹膜炎の診断でステロイドパルス療法施行された。以後も症状は完全には消失せず, 9 月 29 日の腹部 CT 検査所見では小腸の広範な壁肥厚を認め, さらにステロイドミニパルス療法施行された。10 月 19 日の腹部 CT 検査所見では腹水および小腸, 結腸の広範な壁肥厚を認めたが, その他検査所見において, 明らかな消化管穿孔の所見は認めず, 内科的治療継続のため 10 月 21 日当院内科に転院となった。内科入院後, SLE 自体の活動性がさらに増強し, ネフローゼ症候群の増

悪, 中枢神経症状も認めため, ステロイドパルス療法を続けるとともにエンドキサンパルス療法が施行された。しかし腹部症状改善せず, 10 月 28 日より下血出現, 次第に腹痛増強し, 11 月 1 日腹部単純 XP にて free air を認めたため, 外科紹介となった(Fig. 1)。

入院時現症: 血圧 140/90mmHg, 脈拍は 122/分整, 体温 36.2 で眼瞼結膜に貧血を認めた。腹部は軽度膨隆し, 全体に圧痛があり, 筋性防御を認めた。

入院時検査所見: 血液生化学検査では強い貧血とネフローゼによる低タンパク血症を認めた CRP は 25.3 mg/dl で強い炎症所見が見られ, また各種補体値の低下, 抗核抗体陽性, 抗 DNA 抗体陽性で SLE が活動期であることを示していた(Table 1)。胸部 X 線写真では free air および心タンポナーデによる心拡大を認めた。

以上から, 消化管穿孔の診断で同日, 全身麻酔下に緊急手術を施行した。

手術所見: 膿性腹水を多量に認めた。また横行結腸左側に約 10cm にわたって暗紫色を呈し, 膿苔の付着する炎症性変化が見られ, 同部に多発する小穿孔を認めた。他部位の消化管に異常は見られなかった。手術は壊死部の横行結腸を部分切除し, 結腸断端を口側, 肛門側ともに腹腔外へ挙上して, 人工肛門を造設した。

切除標本肉眼所見: 広い範囲にわたる粘膜のびらん多発する潰瘍病変を認め, その幾つかに穿孔が認められた(Fig. 2)。

病理組織所見: 粘膜のびらん, 潰瘍形成に加え, 全層性に強い炎症所見を伴い, 血栓を形成する動脈を多数認め, 血管炎の所見を呈していた(Fig. 3)。

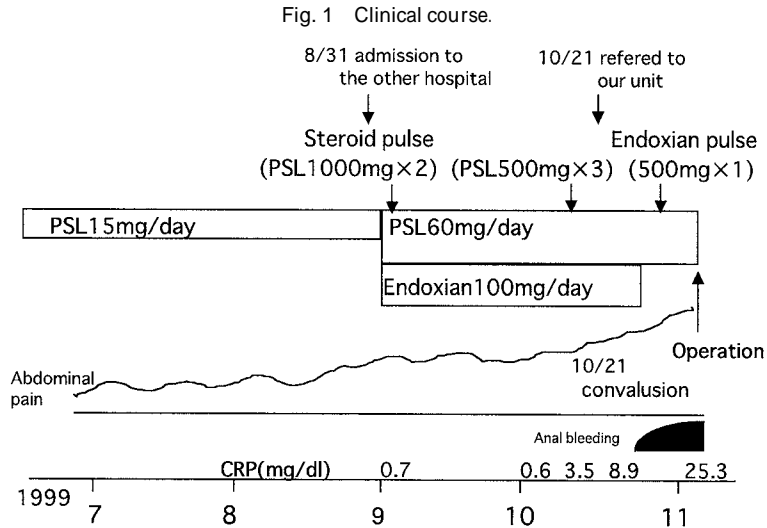
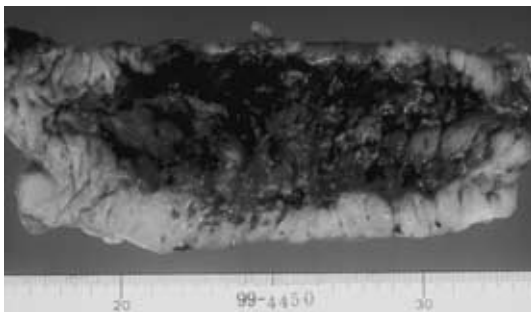


Table 1 Laboratory data on admission

WBC	2,520 / $\mu$ l	TP	3.8 g/dl	GOT	11 IU/l
RBC	$211 \times 10^4$ / $\mu$ l	Alb	1.8 g/dl	GPT	9 IU/l
Hb	6.2 g/dl	BUN	25 mg/dl	$\gamma$ GTP	37 IU/l
Ht	18.8 %	Cre	1.5 mg/dl	LDH	223 IU/l
Plt	$18.9 \times 10^4$ / $\mu$ l	Na	107 mEq/l	ALP	81 IU/l
C3	32.7 mg/dl	K	4.8 mEq/l	TBil	0.3 mg/dl
C4	16.9 mg/dl	Cl	111 mEq/l	ChE	0.41 $\Delta$ PH
Anti-Nucl. Ab( + )		Ca	7.7 mg/dl	CK	5 IU/l
CH50	12.0 mg/dl	CRP	25.3 mg/dl	Glu	77 mg/dl
Anti-DNA. Ab( + )				PT	11.2 sec
				APTT	32.6 sec

Fig. 2 The resected specimen showed that erosion and multiple perforations were found in the transverse colon.



術後経過：術後集中治療にて一時小康状態を得たが、敗血症から完全に離脱できず、その後全身状態は悪化、多臓器不全およびDICのため術後約1か月で死亡した。

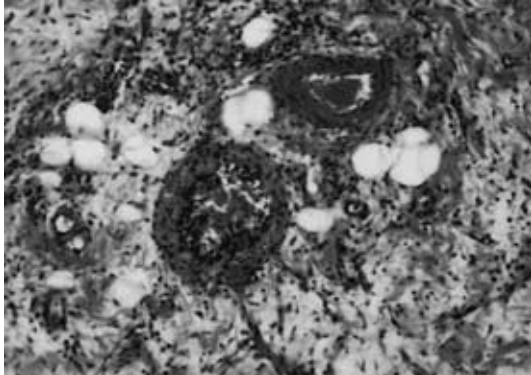
### 考 察

全身性エリテマトーデス(SLE)は多彩な臨床症状を呈する自己免疫疾患であり、消化器症状を伴うことが多く、平山ら<sup>1)</sup>は約60%の症例で、嘔気、嘔吐、下痢、腹痛等の消化器症状を呈したと報告している。なかでもSLEの血管病変による消化器症状はSLE自体活動期であることが多く、消化管穿孔を来した場合には、その予後は不良である。

我々の症例では、病理組織学的検査所見にPollarkら<sup>2)</sup>の言うSLEの血管炎に特徴的なフィブリノイド壊

死は認められなかったが、臨床経過、摘出標本を合わせて考えると、SLE 増悪に伴う血管病変が、横行結腸に虚血性的変化をもたらし、潰瘍穿孔に至ったと推測された。

Fig. 3 Histological findings of the specimen shows arterioles with thrombi in the necrotic intestinal wall. (H.E. stain  $\times 400$ )



SLE の消化器症状がしばしば見られるのに対し、SLE に伴う消化管穿孔自体の報告は比較的少なく、海外での報告も散見される程度で<sup>3)-7)</sup>、むしろ本邦からの報告がよく見られる。我々が検索しえた限りの本邦報告例は 22 例であったが、うち 8 例が死亡していた (Table 2)<sup>8)-27)</sup>。8 例の死亡例においては、生存例と比較して、腹部所見に乏しい症例が多く、それが診断の遅れにつながっていた。

我々の症例でも Berg ら<sup>28)</sup>の報告にもあるようにステロイドにより腹部徴候が隠され、診断の遅れにつながったと考えられた。またネフローゼ症候群の増悪、心タンポナーデ、中枢神経症状も認め、SLE の活動性は明らかに亢進しており、術後経過を悪化させる要因にもなっていた。

今回初発の腹痛出現から外科紹介、緊急手術まで約 60 日を要している。内科的治療もステロイド治療が基本となっており、病態も多岐にわたって、合併症の診断に難渋した。

救命の可能性があるとするれば穿孔後、速やかな外科的対応と思われるが、そのため Byun ら<sup>29)</sup>は CT によ

Table 2 A list of Japanese report of the perforation associating SLE

	year	sex	age	chief complaint	suffering period	PSL/day	Site of perforation	outcome
1.	1977	F	31	Abd fullness	2y	( - )	ileum	dead
2.	1981	F	22	Abd fullness	1.5y	30 mg	jejunum	alive
3.	1983	F	38	Abd pain, anal bleeding	10M	unknown	unknown	dead
4.	1984	F	8	Vomiting	7M	pulse	jejunum	alive
5.	1984	F	15	Anal bleeding	4y	unknown	jejunum	dead
6.	1984	F	32	Abd fullness	2y	30 mg	jejunum	alive
7.	1986	F	37	Abd pain, vomiting	14y	40 mg	ileum	dead
8.	1988	F	28	Abd pain	9y	unknown	jejunum	alive
9.	1991	F	27	Abd pain	7M	120 mg	ileum	dead
10.	1991	F	34	Abd pain	unknown	30 mg	sigmoid	alive
11.	1993	F	36	Convulsion	2y	40 mg	sigmoid	alive
12.	1994	F	51	Abd pain	17y	semipulse	sigmoid	dead
13.	1995	F	46	Anal bleeding	17y	unknown	rectum	alive
14.	1995	F	40	Abd pain	21y	unknown	transverse	alive
15.	1996	M	65	Anal bleeding	3y	unknown	rectum	unknown
16.	1998	F	54	Fever	27y	15 mg	rectum	dead
17.	1998	F	24	Abd pain, fever	5y	unknown	ileum	alive
18.	1999	F	53	Abd pain	13y	10 mg	ileum	alive
19.	1999	F	51	Fever	13y	unknown	rectum	alive
20.	1999	M	41	Abd pain, fever	25y	10 mg	rectum	alive
21.	1999	F	43	Abd pain	19y	60 mg	ileum	dead
22.	2000	F	56	Abd pain	30y	unknown	ileum	unknown
23.	Our case	F	24	Abd pain, anal bleeding	6y	pulse	transverse	dead

る follow up の有用性を報告しており、また Alcocer-Gouyonnet ら<sup>30)</sup>はループス腹膜炎の経過中に腹部単純 XP において腸管気腫症を認めた場合には緊急手術の適応であると報告している。本症例でも下血出現から手術までの間に、これら画像診断における厳重な観察がなされなかった点が、反省させられた。

しかし、SLE の大腸多発潰瘍がステロイド療法やエンドキサン療法で改善した報告<sup>31,32)</sup>がある一方で、ステロイド穿孔に關与するとの報告もあり<sup>33)</sup>、一定の見解は得られていない。すなわち SLE の血管病変に対する治療が逆に穿孔の誘因となった可能性も否定できず、今後の原因究明と早急な治療体系の確立が期待される。

したがって現時点では、SLE の活動期に消化器症状を認めた場合、画像診断を中心とする早期からの厳重な経過観察が必要であり、消化器外科医にとっても、病変の変化にあわせた慎重かつ適切な治療選択が大切と考えられた。

## 文 献

- 1) 平山洋二：全身性エリテマトーデスにおける消化器病変。Gastroenterol Endosc 24 : 405-421, 1982
- 2) Pollark VE, Grove WJ, Kark RM et al : Systemic lupus erythematosus stimulating acute surgical conditions of the abdomen. N Engl J Med 259 : 258-266, 1958
- 3) Testini M, Marqari A, Piccinni G et al : A catastrophic complication of systemic lupus erythematosus : massive mesenteric infarction. Hepatogastroenterology 47 : 761-762, 2000
- 4) Dogle GJ, Puqash RA, Clark JA et al : Jejunal perforation mimicking acute pancreatitis in a patient with acute abdominal pain : emphasis on ischemic bowel disease. Can Assoc Radiol J 50 : 159-160, 1999
- 5) Chulakamontri T, Wattanasrichaiqoon S, Hutachoke W et al : Nontraumatic perforations of the small intestine. J Med Assoc Thai 79 : 762-766, 1996
- 6) Eberhard A, Shore A, Silverman E et al : Bowel perforation and intestinal cystitis in childhood systemic lupus erythematosus. J Rheumatol 18 : 746-747, 1991
- 7) Zizic TM, Shulman LE, Stevens MB et al : Colonic perforation in systemic lupus erythematosus. Medicine ( Baltimore ) 54 : 411-426, 1975
- 8) 潮平芳樹, 上原 元, 松本広嗣ほか：全身性エリテマトーデスの急性腹症の2例。リウマチ 33 : 235-241, 1993
- 9) 川村 肇, 権田信之, 押味和夫ほか：ステロイド中断後回腸壊死と腎症急性増悪をきたした全身性エリテマトーデスの1例。日臨免疫会誌 3 : 96-103, 1977
- 10) 鬼塚正孝, 更科広美, 尾野 睦ほか：腸管穿孔と腸狭窄を合併した SLE の1例。日消外会誌 14 : 1639-1644, 1981
- 11) 三友紀男, 栗野隆行, 平上博資ほか：壊死性血管炎による腸穿孔にて死亡した非定型的 SLE の1剖検例。日内会誌 72 : 517, 1983
- 12) 大西利明, 今中孝信：閉塞性血管病変により小腸穿孔をきたした SLE の1例。リウマチ 24 : 626, 1984
- 13) 檜山英三, 市川 徹, 横山 隆ほか：小児 SLE に合併した小腸穿孔の2例。日小児外会誌 20 : 1239-1246, 1984
- 14) 江口つや子, 守内順子, 市川幸延ほか：ループス膀胱炎を合併し多彩な腹部症状のあと小腸穿孔にて死亡した全身性エリテマトーデスの1例。リウマチ 26 : 543, 1986
- 15) 北村 薫, 中林 恒, 手島康一ほか：SLE に合併した小腸穿孔の1治験例。日消病会誌 85 : 1603, 1988
- 16) 荻原恵里, 青木昭子, 川井孝子ほか：腸穿孔を合併した全身性エリテマトーデスの2例。日臨免疫会誌 14 : 321-326, 1991
- 17) 小関 至, 阿部 敬, 酒井 基ほか：腸穿孔を来した SLE のまれな1例。リウマチ 38 : 523-528, 1998
- 18) 大久保貴生, 久保田芳郎, 大矢正俊ほか：SLE 経過中、ステロイド大量投与後に S 状結腸穿孔を起こした1例。手術 48 : 1409-1412, 1994
- 19) 寺内誠司, 藤井久男, 畑 倫明ほか：SLE 患者に合併した直腸穿孔の1例。日本大腸肛門病会誌 52 : 974, 1999
- 20) 西島弘二, 西村元一, 伏田幸夫ほか：経過中に小腸穿孔をきたした抗リン脂質抗体陽性の全身性エリテマトーデスの1例。日臨外会誌 60 : 1947-1951, 1999
- 21) Teramoto J, Takahashi Y, Katuki S et al : Systemic lupus erythematosus with a giant rectal ulcer and perforation. Intern Med 38 : 643-649, 1999
- 22) 米山公康, 秋山芳伸, 戸枝弘之ほか：腸管穿孔をきたした全身性エリテマトーデスの1例。日腹部救急医会誌 20 : 898, 2000
- 23) 船越 元, 柏木陽一郎, 横田英介ほか：小腸潰瘍の穿孔をきたした全身性エリテマトーデスの1例。内科 83 : 977-980, 1999
- 24) 迎山恭臣, 高橋 晃, 大藪久則ほか：SLE・粟粒結核患者に生じた回腸穿孔の1例。日腹部救急医会

- 誌 18 : 180, 1998
- 25) 川嶋 彰, 原田卓志, 須沢美代子ほか: 多彩な臨床所見を呈し, 大腸潰瘍から穿孔性腹膜炎を合併した全身性エリテマトーデスの 1 例. *Endosc Forum digest* 12 : 314, 1996
- 26) 加藤知子, 栗原亮子, 白崎有正ほか: 直腸穿孔より敗血症を来した SLE の 1 症例. *日内会関東会抄集* 6 : 171, 1995
- 27) 天野浩文, 石川直美, 戸叶嘉明ほか: 特発性腸穿孔を併発した SLE の 1 例. *日内会関東会抄集* 6 : 151, 1995
- 28) Berg P, Postel AH, Lee SL : Perforation of the ileum in steroid-treated systemic lupus erythematosus. *Am J Dig Dis* 5 : 274-282, 1960
- 29) Byun JY, Ha HK, Yu Sy et al : CT features of systemic lupus erythematosus in patients with acute abdominal pain : emphasis on ischemic bowel disease. *Radiology* 211 : 203-209, 1999
- 30) Francisco Alcocer-Gouyonnet, Carlos Chan-Nunez, Jorge Hernandez et al : Acute abdomen and lupus enteritis : thrombocytopenia and pneumatosis intestinalis as indicators for surgery. *Am Surg* 66 : 193-195, 2000
- 31) 井上卓也, 鈴木憲明, 牛山 理ほか: 直腸多発潰瘍を合併した全身性エリテマトーデスの 1 例. *九州リウマチ* 15 : 137-141, 1996
- 32) Grimbacher B, Huber M, von Kempis J et al : Successful treatment of gastrointestinal vasculitis due to systemic lupus erythematosus with intravenous pulse cyclophosphamide : a clinical case report and review of the literature. *Br J Rheumatol* 37 : 1023-1028, 1998
- 33) 森田敏裕, 藤井久男, 山本克彦ほか: 壊死型虚血性腸炎の臨床的検討. *Gastroenterol Endosc* 38 : 1029-1034, 1996

#### A Case of Colonic Perforation during Steroid Pulse Therapy for SLE

Yasuhiro Inoue, Eiji Minato, Takayuki Yamamoto, Chikao Miki and Masato Kusunoki  
Second Department of Surgery, Mie University, School of Medicine

A 24-year-old woman diagnosed with systemic lupus erythematosus (SLE) 7 years earlier was admitted due to lupus peritonitis associating SLE in August 1999. Despite intensive steroid pulse therapy, her abdominal pain intensified and radiological examination suggested intestinal perforation. An emergency laparotomy showed perforation of the transverse colon, which was partially resected followed by a colostomy was performed. Despite intensive treatment, she died of Disseminated intravascular coagulopathy (DIC) on postoperative day 35. Intestinal perforation associating SLE is rare but fatal, requiring strict follow-up and adequate therapy.

Key words : SLE, perforation, steroid pulse therapy

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 35 : 342-346, 2002]

Reprint requests : Yasuhiro Inoue Department of Surgery, Mie University School of Medicine  
Edobashi 2-174, Tsu, 514-8507 JAPAN