#### 臨床経験

# Crohn 病の難治性直腸肛門部病変に対する直腸切断術

横浜市立大学附属市民総合医療センター難病医療センター,横浜市立市民病院外科<sup>1)</sup>, 横浜市立大学大学院消化器病態外科学<sup>2)</sup>

小金井一隆 木村 英明<sup>1)</sup> 杉田 昭<sup>1)</sup> 荒井 勝彦<sup>1)</sup> 福島 恒男<sup>1)</sup> 嶋田 紘<sup>2)</sup>

内科的治療と局所外科治療で改善しない Crohn 病の直腸肛門部病変に対する直腸切断術の適応,効果と問題点を,自験 12 例を対象に検討した.結果:直腸肛門狭窄と複雑痔瘻が 83% (12 例中 10 例) にあり,8 例に直腸から周囲に伸展する瘻孔,直腸周囲膿瘍か直腸膣瘻を合併した.残り 17% (12 例中 2 例) は線維化した下部直腸から生じた痔瘻の1 例と狭窄した直腸から周囲に瘻孔が伸展し膿瘍を形成した1 例であった.術後,全例で疼痛,発熱,膣からの分泌,排尿困難が改善し,86% (7 例中 6 例)で瘻孔の分泌物が減少した.合併症は会陰創治癒遅延が42% (12 例中 5 例),骨盤内膿瘍が8.3% (12 例中 1 例)あった.創治癒遅延の1 例は分泌物を排出する瘻管を形成した.結語:難治性直腸肛門部病変に対する直腸切断術は術後合併症があるが,症状を改善しQOLを向上した.直腸肛門狭窄に瘻孔を伴う病変を合併し,保存的に改善しない症例には直腸切断術を考慮すべきと考えられた.

## はじめに

Crohn病に合併する直腸肛門部病変の多くは内科治療や seton 法をはじめとする局所外科治療で改善するが<sup>1)2)</sup>,これらの治療で改善しない難治性病変も存在する。難治性直腸肛門部病変による疼痛,分泌物,発熱などによって,社会生活が制限され,quality of life (QOL)が著しく低下している症例に対する外科治療には人工肛門造設と直腸切断術があり,前者は症状を改善するが<sup>3)</sup>,病変の改善率は低く<sup>4)5)</sup>,造設後も新たな直腸肛門部病変が出現し<sup>6)</sup>、その主な役割は症状改善である。一方,後者は直腸肛門部病変自体がなくなるが,会陰創の創傷治癒遅延などの合併症が問題となる<sup>7)~9)</sup>.

今回,自験例で難治性直腸肛門部病変に対して 行った直腸切断術の術後経過を検討し,その適応 について考察した.

## 対 象

1990年から2004年7月までに、横浜市立市民

<2005年10月19日受理>別刷請求先:小金井一隆 〒232-0024 横浜市南区浦舟町4--57 横浜市立大学 医学部附属市民総合医療センター難病医療センター 病院外科と横浜市立大学附属市民総合医療セン ター難病医療センターで難治性直腸肛門部病変が あり、それらに伴う疼痛、分泌物、発熱などによっ て社会生活が制限され、quality of life (QOL) が著 しく低下しているため、その改善を目的として直 腸切断術を行った Crohn 病 12 例(男性 8 例,女性 4例)を対象とした、症例の臨床像をTable 1に示 す. 痔瘻が Crohn 病の初発症状であった症例が 5 例で、全例に痔瘻の既往があった. 直腸肛門部病 変発症時年齢は24歳(16~38歳)であった.直腸 切断術前には、薬物療法が全例に、栄養療法が8 例に行われ、外科的治療はシートン法、fistulectomy, lay open などの痔瘻根治術, あるいは膿瘍 切開排膿が11例に行われた.9例(75%)に病変 の改善を目的に人工肛門造設術が行われたが、直 腸肛門部病変が改善しないか、新たな病変が出現 したため直腸切断術を行った(Table 2). うち1 例は直腸肛門部病変が改善したため、いったん人 工肛門を閉鎖したが、再度悪化したため直腸切断 術を行った(症例4). 直腸切断術後の観察期間は 29 か月 (3~64 か月) であった.

2006年 4 月 95(523)

Table 1 Clinical aspects of 12 patients with abdominoperineal resection for intractable anorectal Crohn's disease

| Male: Female   | 8:4           |
|--|---------------|
| Site of Crohn's disease                              |               |
| ileocolitis  | 10            |
| colitis  | 2             |
| Median age at onset of CD * (years)                  | 21 (8-28)     |
| Median age at onset of ARC ** (years)                | 24 (16-38)    |
| Median duration from onset of CD to ARC (years)      | 7.5 (0-27.4)  |
| Median duration from onset of ARC to APR *** (years) | 17 (5.8-28.3) |

<sup>\*</sup> CD: Crohn's disease

 Table 2
 Preoperative treatment for anorectal complication

(N = 12)

|                           | Number of patients |
|---------------------------|--------------------|
| Medical treatment         |                    |
| 5-ASA                     | 12                 |
| TPN                       | 7                  |
| ED                        | 5                  |
| Metronidazole             | 4                  |
| Steroids                  | 4                  |
| Immunosupressives         | 2                  |
| Infliximab                | 2                  |
| Surgical treatment        |                    |
| Stoma creation            | 9                  |
| Seton treatment           | 6                  |
| Laying open, Fistulectomy | 5                  |

## 方 法

直腸切断術の適応となった病変について術前画 像所見と切除標本からみた形態を検討した.手術 の効果は自覚症状の改善,就労状況からみた.

術後合併症として会陰創の治癒遅延,腹腔内感染に注目し,会陰創は完全に閉鎖しないものすべてを未治癒,3か月以上を治癒遅延とした.

## 結 果

# 1. 直腸肛門部病変

直腸肛門部病変は重複例を含め、下部直腸、肛門に Hughes<sup>10)</sup>の分類による primary lesion を有する複雑痔瘻 11 例(坐骨直腸窩痔瘻 9 例、骨盤直

Fig. 1 Typical anorectal stenosis with fistula (Case 2). Barium enema of showing severe anorectal stenosis with fistula (black arrow).



腸窩痔瘻 2 例), 直腸肛門狭窄 11 例, 直腸から周囲に伸展する瘻孔 6 例 (Fig. 1), 直腸周囲膿瘍 7 例(坐骨直腸窩膿瘍 4 例, 骨盤直腸窩膿瘍 3 例), 直腸膣瘻 3 例, 直腸周囲への炎症波及による神経因性膀胱 1 例<sup>11)</sup>であった (Table 3).

複雑痔瘻と直腸肛門狭窄が12 例中10 例(83%) に合併し、うち8 例にはさらに直腸から周囲に伸展する瘻孔、あるいは直腸周囲膿瘍、あるいは直腸膣瘻が合併した(Table 3). 12 例中1 例(8.3%) では線維化した直腸から示指が入るほどの大きな痔瘻が発生し(症例11)、1 例(8.3%) は坐骨直腸 窩痔瘻がシートン法で完全に閉鎖したが、直腸狭窄と歯状線の6cm 口側から直腸周囲に伸展する瘻孔があり膿瘍を形成していた(症例12).

人工肛門造設を行わずに直腸切断術を施行した3例(25%)は、複雑痔瘻による著しい疼痛のため麻薬を含む鎮痛剤を常用していた症例(症例2),直腸狭窄のため漏便が著しく、将来のcontinuityを望まなかった症例(症例12),著しい直腸肛門狭

<sup>\*\*</sup> ARC: Anorectal complications

<sup>\*\*\*</sup> APR: Abdominoperineal resection

|                 |                    | ı                  | ı                  |                        |                                 | ı                     |
|-----------------|--------------------|--------------------|--------------------|------------------------|---------------------------------|-----------------------|
| Case            | Complex<br>fistula | Anorectal stenosis | Perirectal abscess | Fistula<br>from rectum | Recto (ano)-<br>vaginal fistula | Neurogenic<br>bladder |
| 1               | +                  | +                  | +                  | +                      | +                               |                       |
| 2               | +                  | +                  | +                  | +                      |                                 |                       |
| 3               | +                  | +                  | +                  | +                      |                                 |                       |
| 4               | +                  | +                  | +                  | +                      |                                 |                       |
| 5               | +                  | +                  | +                  |                        |                                 | +                     |
| 6               | +                  | +                  | +                  |                        |                                 |                       |
| 7               | +                  | +                  |                    | +                      | +                               |                       |
| 8               | +                  | +                  |                    |                        | +                               |                       |
| 9               | +                  | +                  |                    |                        |                                 |                       |
| 10              | +                  | +                  |                    |                        |                                 |                       |
| 11              | +                  |                    |                    |                        |                                 |                       |
| 12              |                    | +                  | +                  | +                      |                                 |                       |
| Total<br>Number | 11                 | 11                 | 7                  | 6                      | 3                               | 1                     |

**Table 3** Anorectal complications of 12 patients

Table 4 Postoperative improvement of clinical symptoms

| Sto                      |               | ber of<br>ents | 0/1          |
|--------------------------|---------------|----------------|--------------|
| Symptom                  | before<br>APR | after<br>APR   | %Improvement |
| Pain                     | 12            | 0              | 100          |
| Fever                    | 6             | 0              | 100          |
| Purulent discharge       | 7             | 1              | 86           |
| Fecal vaginal discharge  | 3             | 0              | 100          |
| Incontinence             | 2             | 0              | 100          |
| Difficulty in defecation | 2             | 0              | 100          |
| Neurogenic bladder       | 1             | 0              | 100          |

窄を来し、癌が否定できなかった症例 (症例 3) であった.

直腸肛門部の切除は、骨盤内臓神経、骨盤神経 叢を損傷しない範囲で、可及的に炎症のある周囲 組織を含めた切除としたが、全例、直腸肛門周囲 組織は炎症の波及による線維化を伴い、剥離層が 不明確であった、会陰創は1例(症例7)で、多発 瘻孔を含めた線維組織の切除が広範であったた め、欠損部の再建に大臀筋溝皮弁を必要とした。

切除標本では全例に下部直腸壁の著しい線維化と粘膜の萎縮を認めた. 7例(58%)で primary lesion である深い潰瘍を認め、その部位は歯状線付近が6例、歯状線の6cm 口側が1例であった.

 Table 5
 Postoperative complications

(N = 12)

|                                |                    | (11 12)          |
|--------------------------------|--------------------|------------------|
| Complication                   | Number of patients | Incidence<br>(%) |
| Delayed perineal wound healing | 5                  | 42               |
| persistent sinus               | 1                  | 8.3              |
| Pelvic abscess                 | 1                  | 8.3              |

残りの5例中4例は線維化した粘膜に瘻孔を認め、1例は粗大顆粒状で壁が薄化していた。線維化した粘膜に瘻孔を認めた4例中1例では瘻孔の口側に深い潰瘍を認めた.

## 2. 直腸切断術の効果

症状の術後改善率は、瘻孔からの多量の分泌物排出例は86%(7 例中6 例)で、その他は100%であった(Table 4). 分泌物排出が改善しなかった1 例(症例6)は会陰創に分泌物を排出する瘻管(perineal sinus)を形成した症例であった.

術前に就労していた8例全例が術前と同じ職場で就労し、術前、疼痛と分泌物のため長期休職していた1例も復職した。これら9例の就労までの期間は術後2か月が5例、3か月2例、4か月以上が2例であった。術後に在宅中心静脈栄養療法を導入した症例(症例5)と会陰創治癒まで5か月かかった症例(症例1)で、それぞれ4か月と5か月を要した。術前から未就労、未就学の3例は未就

労であったが、術前できなかった外出、家事など が可能となった.

## 3. 術後合併症

会陰創治癒遅延と骨盤内膿瘍が合わせて 42% (12 例中 5 例, のべ 6 例) に発生した (Table 5). 会陰創治癒遅延は 42% (12 例中 5 例) にあり, 22 か月後掻爬術で治癒した 1 例 (症例 6) を含む 4 例が 4~22 か月で治癒した. 残りの 1 例は掻爬術を行い, 4 年 5 か月後の現在も会陰創に分泌物を有する瘻管 (perineal sinus) が残っているが, 疼痛はなく社会復帰している. 骨盤内膿瘍は 8.3% (12 例中 1 例, 症例 1) に発生し, 術後 20 日目に再手術(ドレナージ)を行い, その後, 治癒した. 仙骨前面の瘢痕化した組織に囲まれた大きな膿瘍があり,ドレナージが不十分であったと思われた.

## 考 察

Crohn 病に合併した直腸肛門部病変のうち,内科治療,あるいは局所外科治療で改善せずQOLを低下させている病変を難治性と定義した.その頻度はCrohn病に対する欧米での直腸切断術施行率11~38%<sup>12)~14)</sup>,本邦での肛門部病変合併例の人工肛門造設率10.6%<sup>15)</sup>から推定すると直腸肛門部病変治療例の10%以上と考えられた.

難治性直腸肛門部病変に対し、直腸肛門の空置による炎症の改善を目的として行われる人工肛門造設術は症状を改善するが、continuity を回復できる症例は半数以下で<sup>16)</sup>、人工肛門造設後累積 12年で 32% に直腸切断術を要するとされる<sup>16)</sup>. 従来、本邦では難治性直腸肛門部病変に対し、直腸肛門の空置による病変の改善を目的として、人工肛門造設を行っており、対象の 75% も人工肛門を造設していた。しかし、人工肛門による直腸肛門の空置では病変自体の治癒は困難で、症状の改善がなく、QOLが低下した症例に直腸切断術を行ったが、今後は人工肛門造設術の適応を検討する必要がある.

Crohn 病の直腸肛門部病変合併例が直腸切断 術を要する危険因子として直腸病変の存在,直腸 肛門部病変が初発症状,直腸肛門部病変発症が 30歳以上,3種類以上の直腸肛門部病変合併の四つをあげた報告がある<sup>17</sup>.今回は,直腸肛門部病変が

初発症状の症例、発症が30歳以上の症例とも少なく、必ずしも一致しなかった.一方、直腸肛門部病変の成因から論じた報告もあり、Crohn病のprimary lesion である cavitating ulcer から生じた瘻孔と下部直腸、肛門に狭窄を合併した症例は経過が不良で、抗生剤とドレナージで改善しない場合は早期に直腸切断術を考慮すべきとしている®、今回も多くの症例で直腸の線維性狭窄に瘻孔や膿瘍が合併し、切除標本でも下部直腸に深い潰瘍を認めた。

直腸肛門狭窄は Crohn 病の全層性炎症や痔瘻による線維化が原因のため不可逆的である. これに cavitating ulcer から生じた瘻孔を合併した例では、汚染組織の治癒は困難で、はじめから直腸切断術を考慮してよいと考えられた.

Crohn 病の直腸切断術後合併症の発生率は53~100%と788高く,主なものは会陰創治癒遅延,腹腔内膿瘍,人工肛門関連合併症で,それぞれ,35%,17%,15%と報告されている180.今回,3か月以上の会陰創治癒遅延の頻度はこれより高かったが,骨盤内膿瘍の頻度は低く,perineal sinusの形成も8%で,23%の報告10より少なかった.

創傷治癒遅延に影響する因子として高位痔瘻, 高位直腸膣瘻の合併と創感染型があり、perineal sinus は広汎な直腸肛門部病変に対し括約筋外ま で切除した例と術中の便汚染があった例で多いと される<sup>19</sup>.

直腸切断術を要する多くの症例には、痔瘻、膿瘍などの感染性病変が合併し、それらは線維化した組織の中に広く複雑に伸展している。これらを十分に切除あるいは掻爬し、術中汚染を予防し、感染巣を残さないことが創傷治癒遅延の予防に重要と思われた。

直腸切断術後は術前に認めた疼痛,発熱,漏便などの症状はほとんど改善され,75%の症例で就労が可能となった。今回,就労まで長期間を要した症例は会陰創治癒遅延のあった症例であることから,本合併症を予防することが,早期社会復帰に重要と思われた.

保存的治療で改善がなく QOL を低下させる難

治性直腸肛門部病変のうち、特に cavitating ulcer から生じた複雑痔瘻、膣瘻、直腸から周囲に伸展する瘻孔などと直腸の線維性狭窄を合併した症例では、早期に直腸切断術を考慮することが必要と思われた。

なお、文献は、医学中央雑誌にて、キーワードを「クローン病」「直腸肛門部病変」「人工肛門造設術」「直腸切断術」として、MEDLINE にて、キーワードを「Crohn's disease」「anorectal complication」「stoma」「fecal diversion」「abdominoperineal resection」として、1983~2005 年までの期間で検索した。

## 文 献

- Present DH: Perianal fistula. Edited by Bayless TM, Hanauer SB. Advanced therapy of Inflammatory bowel disease. B.C. Decker, London, 2001, 395—399
- Koganei K, Sugita A, Harada H et al: Seton treatment for perianal Crohn's fistulas. Surg Today 25: 32—36, 1995
- Harper PH, Kettlewell MGW, Lee ECG: The effect of split ileostomy on perianal Crohn's disease.
   Br J Surg 69: 608—610, 1982
- McIlrath DC: Diverting ileostomy or colostomy in the management of Crohn's disease of the colon. Arch Surg 103: 308—310, 1971
- Van Dongen LM, Lubbers EJC: Perianal fistulas in patients with Crohn's disease. Arch Surg 121: 1187—1190, 1986
- 6) Burman JH, Thompson H, Cooke WT et al: The effect of diversion of intestinal contents on the progress of Crohn's disease of the large bowel. Gut 12: 11—15, 1971
- Yamamoto T, Keighley MRB: Proctocolectomy is associated with a higher complication rate but carries a lower recurrence rate than total colectomy and ileorectal anastomosis in Crohn colitis. Scand J Gastroenterol 34: 1212—1215, 1999

- Williams JG, Hughes LE: Abdominoperineal resection for severe perianal Crohn's disease. Dis Colon Rectum 33: 402—407, 1990
- Scammell BE, Keighley MRB: Delayed perineal wound healing after proctectomy for Crohn's colitis. Br J Surg 73: 150—152, 1986
- Hughes LE: Surgical pathology and management of anorectal Crohn's disease. J R Soc Med 71: 644—651, 1978
- 11) 貴島深雪, 小金井一隆, 清水大輔ほか:神経因性 膀胱を合併した Crohn 病の1例. 日消病会誌 97:708—713.2000
- 12) Levien DH, Surrell J, Mazier WP: Surgical treatment of anorectal fistula in patients with Crohn's disease. Surg Gynecol Obstet 169: 133—136, 1989
- Pritchard TJ, Schoetz DJ, Roberts PL et al: Perirectal abscess in Crohn's disease: drainage and outcome. Dis Colon Rectum 33: 933—937, 1990
- 14) Michelassi F, Melis M, Rubin M et al: Surgical treatment of anorectal complications in Crohn's disease. Surgery 128: 597—603, 2000
- 15) 佐々木巌, 舟山裕士, 松野正紀: Crohn 病の肛門 病変の病態による分類とその外科的治療ならび に成績. 日本大腸肛門病会誌 45:1092—1097, 1992
- 16) Post S, Herfarth C, Schmacher HH et al: Experience with ileostomy and colostomy in Crohn's disease. Br J Surg 82: 1629—1633, 1995
- 17) Regimbeau JM, Panis Y, Marteau P et al: Surgical treatment of anoperineal Crohn's disease: can abdominoperineal resection be predicted? J Am Coll Surg 189: 171—176, 1999
- 18) Yamamoto T, Allan RN, Keighley MRB: Audit of single-stage proctocolectomy for Crohn's disease. Postoperative complications and recurrence. Dis Colon Rectum 43: 249—256, 2000
- 19) Yamatomo T, Bain IM, Allan RN et al: Persistent perineal sinus after proctocolectomy for Crohn's disease. Dis Colon Rectum 42: 96—101, 1999

2006年 4 月 99(527)

#### Abdominoperineal Resection for Intractable Anorectal Crohn's Disease

Kazutaka Koganei, Hideaki Kimura<sup>1)</sup>, Akira Sugita<sup>1)</sup>,
Katsuhiko Arai<sup>1)</sup>, Tsuneo Fukushima<sup>1)</sup> and Hiroshi Shimada<sup>2)</sup>
Chronic Intractable Disease Center, Yokohama City University Medical Center
Department of Surgery, Yokohama Citizen's Municipal Hospital<sup>1)</sup>
Department of Gastroenterological Surgery, Yokohama City University, Graduate School of Medicine<sup>2)</sup>

Introduction: Indications and efficacy of abdominoperineal resection in patients with intractable anorectal Crohn's disease remain unclear. Materials and methods: We studied indications, effects, and complications in 12 patients-8 men and 4 women-undergoing abdominoperineal resection for intractable anorectal Crohn's disease. Results: Of the 12, 83% had both complex perianal fistula and anal or rectal stenosis, and 8 of these also had complications of fistula from rectum or perirectal abscess or ano- or rectovaginal fistula. One patient had a large perianal fistula originating in the rectum with fibrous change. Another had a perirectal abscess and a fistula from the rectum. All resected rectum showed fibrous change and deep ulcers were the primary lesion in 7 of 12 specimens. After abdominoperineal resection, symptoms such as severe perianal pain, pyrexia, vaginal discharge, and disability on urination improved in all 12 (100%). Purulent discharge from fistulas improved in 6 of 7 (86%). Following these improvements, 9 of the 12 (75%) went back to work, although 5 (42%) had 6 complications involving delayed perineal wound healing or pelvic abscess. Conclusions: Abdominoperineal resection relieves symptoms of intractable anorectal Crohn's disease, improving occupational and social functioning in most patients. Anal or rectal stenosis with fistulous complications does not improve with conservative therapy, so abdominoperineal resection should be considered in patients with these complications.

**Key words**: Crohn's disease, anorectal complications, abdominoperineal resection

[Jpn J Gastroenterol Surg 39: 522-527, 2006]

Reprint requests: Kazutaka Koganei Chronic Intractable Disease Center, Yokohama City University Medi-

cal Center

4–57 Urafune-cho, Minami-ku, Yokohama, 232–0024 JAPAN

Accepted: October 19, 2005