

## 症 例

# ステロイド投与中に繰り返し発症した 超高齢者の腸管気腫症の1例

A case of recurrent pneumatosis cystoides intestinalis in an very elderly patient due to steroid treatment.

石川 倫啓  
Tomohiro Ishikawa

横田 良一  
Ryoichi Yokota

中本 裕紀  
Hiroki Nakamoto

山田 健司  
Kenji Yamada

細田 充主  
Mitsuchika Hosoda

田口 宏一  
Koichi Taguchi

## 要 旨

症例は98歳男性。3週間前から水疱性類天疱瘡の診断でプレドニゾロン30mg内服。数日前より腹部膨満と食事摂取量低下を認め当科受診。腹痛や腹膜刺激症状はなく、腹部CTで腸管気腫像と腹腔内遊離ガスを認めしたが、腸管壊死や消化管穿孔を疑う所見は認めなかったことから白血球上昇はステロイドの影響と判断し腸管気腫症の診断で保存的治療目的に入院。プレドニゾロンは減量し継続とした。保存的に改善し食事開始後も腹部症状の出現なく、第17病日に退院した。その後2度再燃をきたしたが、プレドニゾロン中止後は発症を認めなかった。腸管気腫症は腸管壊死や消化管穿孔などの緊急手術を要する病態との鑑別が重要であるが、ステロイド内服により白血球増加していることを診断上考慮する必要がある。特に高齢者は症状が非典型的な場合があり、慎重な判断が必要である。また、ステロイドが成因の場合は再発予防のため可能な限り早期に中止する必要がある。

Key Word : pneumatosis cystoides intestinalis, steroid, very elderly patient

## はじめに

腸管気腫症(腸管嚢胞様気腫症pneumatosis cystoides intestinalis : 以下、PCI)は腸管壁の粘膜下や漿膜下を含む気性嚢胞を形成する比較的稀な病態で、腸管壊死や消化管穿孔の様に緊急手術を要する病態との鑑別が重要である。本症の成因は様々であり、ステロイド投与との関連も示唆されているが、ステロイドによる白血球増加を含めた診断困難性についての報告は少ない。また、高齢者は症状が非典型的な場合もあり、その治療方針の決定は慎重に判断する必要がある。今回、水疱性類天疱瘡に対してステロイド投与中に繰り返し発症した超高齢者のPCIの1例を経験したため報告する。

## 症例

症例：98歳、男性。

主訴：腹部膨満、食事摂取量低下。

既往歴：COPD、高血圧症、虫垂切除術(30歳代)、右鼠径ヘルニア根治術(60歳代)、認知症。

現病歴：3週間前より当院皮膚科で水疱性類天疱瘡の診断に対してプレドニゾロン30mg/日を内服開始となった。数日前より腹部膨満と食事摂取量低下を認めため当科受診された。

入院時現症：身長143cm、体重41kg。意識清明。体温35.8℃。血圧117/86mmHg。心拍数104/分・整。腹部は膨満しているが、緊満なし。圧痛や反跳痛はなく腹膜刺激症状は認めなかった。認知症はあるが、症状の聴取は可能であった。

血液検査所見：WBC 17,500/ $\mu$ l(Neu 90%)、CRP 0.52mg/dlと白血球増多と左方移動、炎症反応の軽度な上昇を認めた。その他は特記すべき異常は認めなかった。なお、ステロイド投与前はWBC 6,800/ $\mu$ l(Neu 72.8%)で、PCI発症前はWBC 10,700/ $\mu$ l(Neu 84.6%)だった。

腹部単純X線写真：広範な小腸拡張とガスの貯留およびブドウの房状の気腫状陰影を認めた(Fig.1)。

腹部造影CT検査：小腸壁の気腫像と後腹膜気腫像を認める(Fig.2a)。右横隔膜下には腹腔内遊離ガス像を認め

る(Fig.2b)。腹水は骨盤底にごく少量あるのみで、その他腸管壊死や消化管穿孔を示唆する所見は認めなかった。また、気胸や縦隔気腫は認めなかった。

腹部所見およびバイタルサインに異常を認めず、白血球上昇はステロイドの影響が大きいと判断し、PCIと診断した。

入院後経過(Fig.3)：保存的治療目的に入院し、絶食による腸管安静を図り、便秘による腸管内圧上昇がPCIに寄与している可能性を考慮し緩下剤を投与した。また、ステロイドの関与が疑われたため、皮膚科と協議しプレドニゾロンを漸減していく方針とした。保存的に腹部膨満は改善し、腹部単純X線写真で腸管気腫像の改善を確認し第5病日より経口摂取を再開した。その後も腹部症状の出現なく第17病日に退院した。その9日後に同様の主訴で当科再診し、初回入院時と同様の理学所見、腹部単純X線写真および腹部造影CT検査所見よりPCIの再燃と診断し入院した(Fig.4)。なお胸部単純CTでは縦隔気腫を認めた(Fig.5)。絶食による腸管安静、緩下剤投与で保存的に改善し経口摂取再開後も腹部症状出現なく経過した。また、ステロイドは2回目入院時にプレドニゾロン20mg/日だったが、その後減量を継続し7.5mg/日とし第22病日に退院となった。しかし、その11日後に再度PCIを発症し入院した。初回および2回目の入院時と同様の病態と判断し保存的治療を行い改善したが、ステロイド投与がPCIの再燃と強く関連していることが疑われたため、皮膚科と協議し5mg/日まで減量していたプレドニゾロンは中止とした。一方で、水疱性類天疱瘡の皮膚病変のコントロールが不十分だったため免疫抑制剤であるミゾリピン150mg/日を開始した。また、腸管への負担を考慮し経口摂取は低残渣食を中心に経腸栄養剤を併用した。その後腹部症状再燃なく、腹部単純X線写真で腸管気腫像の著明な改善を確認し、第22病日に転院となった(Fig.6)。

## 考察

PCIは腸管壁の粘膜下や漿膜下に多房性または直線状の含気性嚢胞を形成する比較的稀な病態で<sup>1)</sup>、その発生機序は原発性と続発性に分けられ、続発性が85%を占めると言われている<sup>2)</sup>。続発性のPCIの発生機序として複数の原因が報告されている<sup>3)</sup>。①腸管内圧上昇：腸管内圧が上昇し、粘膜の微細な損傷部から腸管ガスが壁内に侵入する。②ガス産生菌：クロストリジウム属などのガス産生菌が粘膜下に侵入しガスを産生する。③有機溶剤：有機溶剤であるトリクロロエチレンの慢性暴露。④胸腔内圧上昇：慢性閉塞性肺疾患(COPD)、咳嗽による胸腔内圧上昇により肺胞が損傷し、ガスが縦隔を經由して達する。⑤ $\alpha$ -グルコシダー

ゼ阻害薬<sup>4)</sup>やステロイドなどの投与により発症する。

ステロイドは腸管粘膜下リンパ組織の減少による粘膜の損傷や結合組織に直接作用して粘膜抵抗性を減弱させ粘膜修復過程を妨害すると考えられている<sup>5)</sup>、同様に岸ら<sup>6)</sup>はステロイドの長期投与により肺組織の脆弱化が起こり、縦隔気腫の危険因子となる可能性も示唆している。

自験例のPCIの発生機序に関しては、便秘による腸管内圧の上昇と既往のCOPDのため胸腔内圧上昇により肺胞が損傷し、ガスが縦隔を經由して後腹膜、腹腔内に達した可能性、またステロイド投与による腸管粘膜の損傷及び粘膜抵抗性の減弱が関与した可能性が考えられるが、単一の要素というより、臨床経過からステロイドを主因として便秘、COPDも影響した可能性があると考えられた。

ステロイドとPCI発症に関しては上で述べた様な機序が考えられているが、その投与期間や総投与量との関連については一定の見解はない。自験例のPCI発症までのプレドニゾロン総投与量は600mgだった。小原ら<sup>7)</sup>は重症急性B型肝炎に対してステロイドパルス療法を行い、PCI発症までに総ステロイド投与量がプレドニゾロン換算で計9375mgと大量だったとし、総投与量が腸管粘膜の脆弱性に影響することも考えられると述べている。だが、ステロイドパルス療法との強い関連性を推測したものの、短期間のステロイドパルス療法のみでのPCI症例の報告はみられなかったとしている。一方Fleenorら<sup>8)</sup>は心臓移植後の小児症例において、プレドニゾロン投与量0.5mg/kg/日以上はPCI発症のリスクが高くなると報告している。自験例ではステロイドを漸減したにも関わらず2度の再燃を繰り返した。また、0.5mg/kg/日未満の投与量においても発症しており、ステロイド総投与量が腸管粘膜の脆弱性に影響しPCI発症に寄与した可能性があると考えられる。

また、ステロイド中止により短期間で腸管粘膜脆弱性の回復が得られるかは不明であり、伊藤ら<sup>9)</sup>はステロイド中止の判断はPCI発症とは独立して、症状緩和効果や有害事象、予後を考慮して行う必要があるとしている。自験例は水疱性類天疱瘡の皮膚病変のコントロールが不良だった一方で短期間にPCIを繰り返しており、皮膚科と協議しステロイドを減量していく方針とした。免疫抑制剤もPCI発症の原因薬剤の1つとする報告もあるが、自験例では最終的にステロイドを中止し免疫抑制剤を開始後にはPCI発症を認めなかった。大谷ら<sup>10)</sup>はPCI再発予防のためには原因薬剤の中止を行うことが最善の治療方法であると述べており、自験例でもステロイド中止によりPCIが軽快しており、ステロイドが原因薬剤と考えられるPCI症例では可能な限り早期にステロイドを中止する必要があるのではな

いかと考えられた。ただし、ステロイド中止により原疾患の悪化をきたす可能性や副腎クリーゼ発症のリスクは念頭に置くべきであり慎重に経過観察を行う必要がある。

原疾患である水疱性類天疱瘡は表皮基底膜構成蛋白に対する自己抗体により表皮下水疱をきたす自己免疫性水疱症であり、粘膜疹の頻度は少ないとされる。芦田ら<sup>11)</sup>は水疱性類天疱瘡の消化管病変は一般的でなく、PCIの直接的な発症要因とは考えにくいと報告している。

PCIの治療は腸管壊死や消化管穿孔がない限り原則として保存的治療であるが、全身状態や腹部所見、自覚症状、血液・画像検査を総合的に判断する必要がある。山口ら<sup>12)</sup>はPCI治療方針決定のためのアルゴリズムを提唱し、消化管穿孔や腸管壊死などの緊急的外科治療を要する疾患の除外の重要性を訴えている(Fig.7)。自験例は好中球優位の白血球増多とCRP上昇が見られたが、相沢ら<sup>13)</sup>はステロイド剤の白血球分画に及ぼす影響について、好中球分画が投与前の56%から76%に増加したと述べていて、また橋本ら<sup>14)</sup>はステロイド投与による好中球増加の程度は投与量、基礎疾患、投与前の好中球数および骨髄の造血能などにより様々であるが、一般に軽度であり、白血球数が20,000/ $\mu$ l以上になることは稀であると述べている。以上より自験例の白血球増多はステロイド投与の影響と考え保存的治療としたが、ステロイド内服により白血球が増多することをPCI診断上考慮する必要があるといえる。

また、超高齢者で認知機能低下のある場合はより慎重な対応が求められる。加藤<sup>15)</sup>は高齢患者の特徴として認知機能低下はもとより、症状が非典型的で、複数の疾患があり、感染などに対する予備力が小さく、治療に対する反応に個人差が大きい治療に難渋すると述べている。

このため腸管気腫像および腹腔内遊離ガスを認めた症例で、穿孔性腹膜炎との鑑別が難しい場合は審査腹腔鏡が低侵襲で有用とする報告が見られる<sup>16)</sup>。武田ら<sup>17)</sup>はPCIで穿孔性腹膜炎との鑑別を要し審査腹腔鏡を行った症例は6例あったとしているが、いずれの症例も開腹術に至らず、症状の増悪なく経過したと述べており、その有用性を報告している。自験例でも超高齢ではあるが穿孔性腹膜炎を否定できなければ低侵襲の審査腹腔鏡を考慮されたと考える。

また、自験例では短期間に2度の再燃を繰り返したが、PCIは約26%に再発が認められるとの報告があり<sup>18)</sup> 19)、一度軽減しても再燃する可能性があることを念頭に管理する必要があると考えられた。

## 文献

- 1) Koss LG : Abdominal gas cysts(pneumatosis cystoides intestinorum hominis);an analysis with a report of a case and a critical review of the literature.AMA Arch Pathol.53(6) : 523-549,1952.
- 2) Li-Li Wu.et al : A systemic analysis of pneumatosis cystoids intestinalis.World J Gastroenterol.19(30) : 4973-4978,2013.
- 3) 上村眞一郎 : ステロイド内服中の気管支喘息に気腹で発症した腸管囊腫様気腫症の1例. 日腹部救急医学会誌 26(6) : 789-792, 2006.
- 4) 村田竜平 他 : 敗血症を伴った  $\alpha$ -グルコシダーゼ阻害薬による腸管気腫症の1例. 日臨外会誌79(4) : 825-830, 2018.
- 5) 野田昌昭 他 : 急性リンパ性白血病の同種骨髄移植後に合併した腸管囊胞様気腫. 臨血42(9) : 696-700, 2001.
- 6) 岸厚次 他 : 混合性結合組織病による間質性肺炎のステロイド治療中縦隔気腫を合併した1例. 日呼吸会誌 38(6) : 480-484, 2000.
- 7) 小原浩 他 : 重症急性B型肝炎経過中に腸管気腫性囊胞症を合併した1例. 日消誌108(7) : 1237-1243, 2011.
- 8) Jonathan T.Fleenor.et al : Pneumatosis intestinalis after pediatric thoracic organ transplantation.Pediatrics.109(5) : e78,2002.
- 9) 伊藤浩明 他 : 終末期がん患者に対するステロイド使用中に続発した腹腔内遊離ガスを伴う腸管気腫症の1例. Palliat Care Res.12(3) : 535-539, 2017.
- 10) 大谷弘樹 他 : 間質性肺炎治療中に大腸腸管囊腫様気腫症を呈した1例. 日臨外会誌74(2) : 442-446, 2013.
- 11) 芦田日美野 他 : ステロイド投与中に腸管気腫症を併発した水疱性類天疱瘡の1例. 高松赤十字病院紀要 7 : 49-52, 2019.
- 12) 山口恵実 他 : 保存的治療にて軽快した腸管囊胞状気腫症の6例. 日本大腸肛門病会誌66(7) : 522-528, 2013.
- 13) 相沢良夫 他 : 副腎皮質ステロイド剤のリンパ球亜分画に及ぼす影響. 炎症4(4) : 349-350, 1984.
- 14) 橋本亮 他 : II. 診断へのアプローチ 1.白血球増加症. 日内会誌96(7) : 1352-1356, 2007.
- 15) 加藤博之 : 1. 高齢者に多い救急疾患. 日老医誌48(4) : 312-316, 2011.
- 16) 伊藤嘉智 他 : 腹腔鏡下に診断治療した腹膜炎刺激症状を有する腸管囊腫様気腫症の1例. 日臨外会誌72(10) : 2667-2671, 2011.



17) 武田泰裕 他：審査腹腔鏡が有用であった著明な気腹症を呈した腸管嚢胞様気腫症の1例. 日腹部救急医学会誌33(8)：1345-1348, 2013.

18) 埴充弘 他：多発性筋炎に合併した間質性肺炎, 偽性腸管閉塞症および腸管嚢腫様気腫の1例. 胃と腸17

(9)：1021-1027, 1982.

19) A.P.Wyatt：Prolonged symptomatic and radiological remission of colonic gas cysts after oxygen therapy.Br.J.Sug. 62(10)：837-839, 1975.

Fig.1



Fig.1 初回入院時の腹部単純X線写真：小腸拡張とガスの貯留およびブドウの房状の気腫状陰影を認める

Fig.3

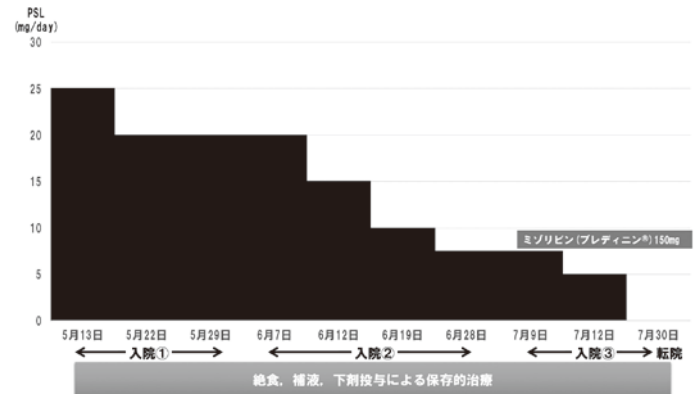


Fig.3 入院後経過

Fig.2a

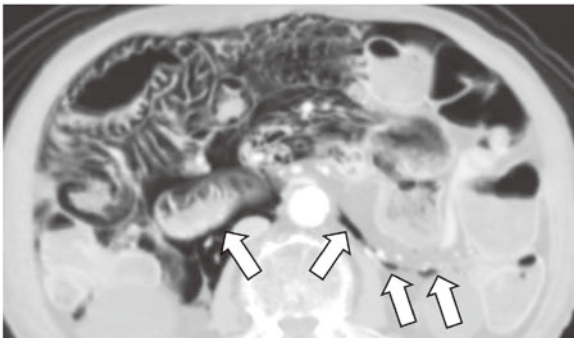


Fig.2a 初回入院時の腹部造影CT (axial)：小腸壁の気腫像と後腹膜気腫を認める (矢印)

Fig.4

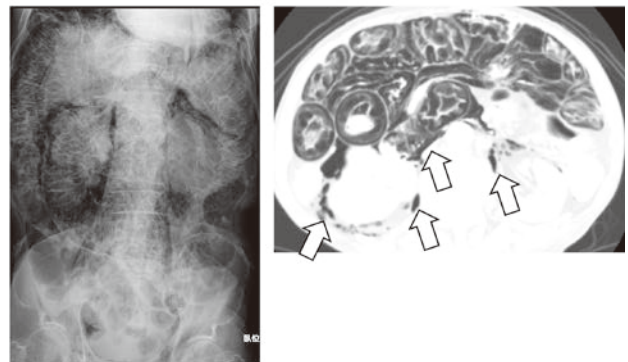


Fig.4 2回目の入院時の腹部単純X線写真および腹部造影CT：小腸拡張とガスの貯留，ブドウの房状の気腫状陰影は増悪を認めた。初回入院時と同様小腸壁の気腫像と後腹膜気腫を認める (矢印)。

Fig.2b

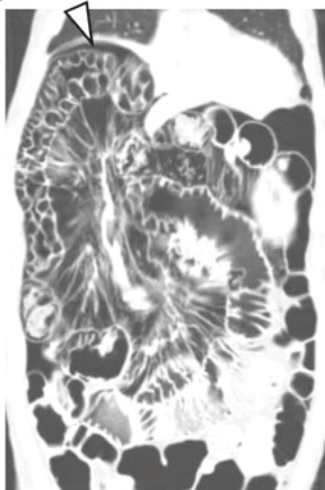


Fig.2b 初回入院時の腹部造影CT (coronal) 右横隔膜に腹腔内遊離ガス像を認める (矢頭)。

Fig.5



Fig.5 2回目の入院時の胸部単純CT：縦隔気腫を認める (矢印)。



Fig.6



Fig.6 転院時の腹部単純 X 線写真：右側腹部に軽度腸管気腫像は残るが著明な改善を認める。

Fig.7

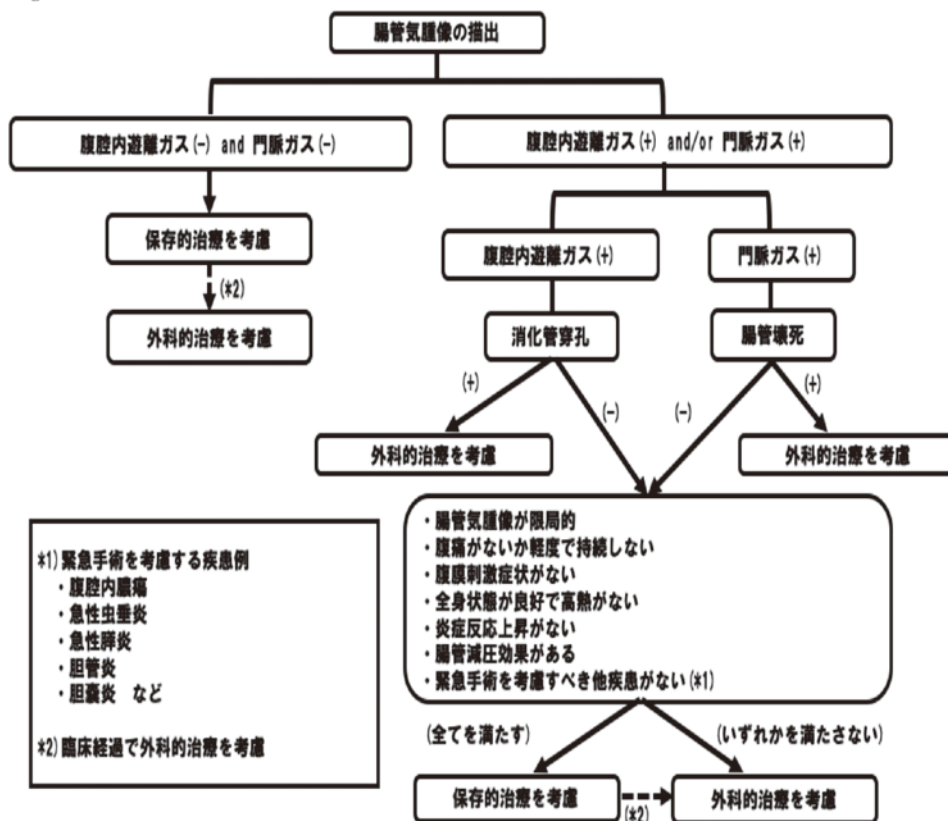


Fig.7 PCI 治療のマネジメント：山口ら<sup>11)</sup>のアルゴリズムを引用。

## 症 例

## 陰茎海綿体膿瘍の1例

CORPUS CAVERNOSUM ABSCESS: A CASE REPORT

村中 貴之  
Takashi Muranaka豊田 朋弘  
Tomohiro Toyota國島 康晴  
Yasuharu Kunishima

## 要 旨

症例は89歳男性、近医内科で有熱性尿路感染症にて入院中、CT検査にて陰茎部に膿瘍が認められ、精査加療目的に当科転院となった。

左陰茎海綿体に4cm程度の膿瘍を認め、陰茎海綿体膿瘍の診断にて切開排膿術を施行した。術後経過は問題なく経過し退院となった。術後2か月の時点で、再燃なく経過している。陰茎海綿体膿瘍は非常にまれな疾患で、尿道の炎症、陰茎部の外傷や処置、他部位感染症からの血行性転移などが原因とされているが、特発性も多く存在する。治療は外科的切除・ドレナージが基本であるが、術後に膿瘍の再燃を認めた症例や、難治性であった症例も報告されている。また、陰茎海綿体膿瘍が壊疽性膿皮症の初期症状であったという報告もあり、術後も厳重なfollow upが必要と考えられた。

Key Word : Penile abscess, Corpus cavernosum, Febrile UTI, Pyoderma gangrenosum

## はじめに

陰茎海綿体膿瘍は外傷、陰茎手術・処置、感染などを契機に発症するまれな疾患である。今回われわれは陰茎海綿体膿瘍に対して切開排尿術を施行し治癒が得られた症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

## 症例

患者：89歳男性

主訴：頻尿・発熱

既往歴：前立腺肥大症にて内服加療中

その他、特記すべきものなし

手術歴：40年前に虫垂切除術

## 現病歴

発熱、頻尿を主訴に前医を受診、検尿にて膿尿を認めたため、有熱性尿路感染症の診断にて前医内科に入院となった。尿道カテーテル留置の上、補液および抗菌薬投与にて治療開始となったが、造影CT検査にて尿道周囲に膿瘍形成を認めたため (fig.1)、当科紹介と

なり、陰茎海綿体膿瘍の診断にて当科転院加療となった。

## 入院時所見・入院後経過

診察にて陰茎根部腹側に4cm大の圧痛を伴う隆起性病変を認めたが、両側精巣、精巣上体、亀頭部、外陰部皮膚には明らかな異常所見を認めなかった。血液・生化学所見ではWBC：5500、好中球：4180、CRP：6.37と炎症反応の軽度高値を認めたが、その他特記すべき所見は認めなかった。陰茎部MRI検査にて左陰茎海綿体腹側に4cmにわたるT2高信号の病変を認め、尿道は右側に偏位していた (fig.2)。左陰茎海綿体より発生した陰茎海綿体膿瘍と診断し、補液と抗菌薬投与を継続した。入院後、速やかに解熱は得られたが、陰茎根部の隆起性病変は縮小せず、切開排膿術及び膀胱瘻造設術の方針となった。

## 手術所見

恥骨上に膀胱瘻を造設した。隆起部 (膿瘍部) 直上に5cm縦切開を入れ、膿瘍壁に到達し、膿瘍壁周囲を可及的に剥離した。尿道海綿体への浸潤は認めず、尿

道は膿瘍壁と剥離可能であった。膿瘍壁を切開し、膿汁を排出（膿培養は大腸菌）した後、膿瘍壁の残存が無いように膿瘍壁を切除した。この時、膿瘍壁は左陰茎海綿体白膜の一部を巻き込んでおり、その部分の陰茎海綿体白膜ごと切除した（fig.3）。十分に洗浄後、明らかな膿瘍壁、膿瘍腔の残存が無いことを確認し、ペンローズドレイン留置の上、閉創して終了とした（手術時間：3時間02分（膀胱瘻造設含む）、出血：50ml）。

### 手術後経過

手術後の経過は問題なく、排液量がごく少量になったため、術後5日目にドレインを抜去、術後7日目のMRIにて膿瘍の再燃を認めなかった（fig.4）。術後9日目に膀胱瘻カテーテルをクランプし、自排尿を開始、術後11日目に膀胱瘻カテーテルを抜去した。その後、創部から少量の排液を認めたため、連日創洗浄で対応し、排液がごく少量となったため、術後22日目に退院となった。

術後2か月の時点で、創部は完全に閉鎖し、排液も認めず、明らかな膿瘍の再燃を認めず経過している。

### 考察

陰茎海綿体は内腸骨動脈系からの分岐である左右の海綿体動脈と陰茎背動脈からの血流を受けている（1）。血流は豊富であり、一般的には陰茎海綿体は虚血・感染に強い組織とされており、陰茎海綿体膿瘍は非常にまれな疾患とされている。しかし、ひとたび感染を来すと難治性で慢性化し、進行すると膿瘍形成すると報告されている（2）。

陰茎海綿体膿瘍の原因としては経尿道的操作等に伴う尿道周囲炎や尿道周囲膿瘍、陰部の外傷や陰茎折症など外傷からの直接の波及、性機能障害治療を目的とした陰茎海綿体注射やプロステシス挿入など陰茎の手術や処置、他部位の感染症からの血行性転移等があげられるが、原因がはっきりせず、特発性とされるものも多く報告されている。本症例では、手術時に明らかな外傷は認められず、尿道も明らかな異常所見を認めず、膿瘍腔とはきれいに剥離可能であったこと、先行する頻尿・発熱を考慮すると、有熱性尿路感染症からの波及が原因として考えられる。しかし、発熱を認めてから膿瘍確認までが数日間と短いため、はっきりとした原因については不明である。

治療法について、保存的加療にて治癒が得られた報告も一部あるが（3）、一般的な膿瘍に対する治療と同様、抗菌薬治療のほか、異物があれば異物摘除し、切開排膿による外科的ドレナージが基本とされる。本症例も抗菌薬投与後に膿瘍の縮小が認められなかったた

め、早期の切開排膿術を施行した。また、手術後に膿瘍が再燃した報告もあり、再燃した症例を検討したところ、微小な膿瘍腔が残存していたことが原因であったと考えられ、切開排膿術の際にすべての膿瘍腔を除去、ドレナージする必要があると報告されている（4）。本症例においては、膿瘍壁も可及的に除去し、肉眼的には膿瘍腔の残存がないことを十分に確認して閉創している。また、尿道内の異物が感染治療に影響を及ぼす可能性も考慮し、手術の際に膀胱瘻造設術も施行し、術後創部が落ち着くまでは膀胱瘻による排尿管理とした。

難治性陰茎海綿体膿瘍の一部は、壊疽性膿皮症の初期症状であったとの報告もある（5）。壊疽性膿皮症の治療はステロイドなどの免疫抑制療法が適応となるが、基本的な感染症の治療とは相反するものとなる。術後も膿瘍の再燃や炎症が外陰部にも波及するなどの症状が出た場合、壊疽性膿皮症の鑑別も慎重に行い、治療法を見極めていくことが重要と考えられる。

本症例において、術後2か月時点で膿瘍の再燃は認めず、排尿状態も良好で経過しているが、術後1-2年程度はfollow upが必要と考えられた。

### 結語

陰茎海綿体膿瘍にて切開排膿術を施行した1例を経験した。一般的に陰茎海綿体は感染に強い組織とされているが、膿瘍を生じた際には難治性となることがあり、治療の際には確実なドレナージが重要であると考えられた。また、壊疽性膿皮症の初期症状である可能性も念頭に置いた上で、術後もfollow upが必要と思われた。

### 参考文献

- 1) Nagao K. et al: Cavernosal anatomy and mechanism of erectile function. J. Smooth Muscle Res. 9: J37-45, 2005
- 2) Sagar J, et al: Spontaneous penile (cavernosal) abscess: case report with discussion of aetiology, diagnosis, and management with review of literature. Scientific World Journal 5: 34-41, 2005
- 3) 高橋 聡 他：保存的加療にて治癒した陰茎海綿体膿瘍の1例. 泌尿器外科18：71-73, 2005
- 4) 小山順太郎 他：陰茎全摘術を余儀なくされた陰茎海綿体膿瘍の1例. 泌尿紀要61：109-114, 2015
- 5) 飯田啓太郎 他：陰茎海綿体膿瘍を初期症状とした陰茎壊疽性膿皮症の1例.泌尿紀要61：115-119, 2015





Fig.1 陰茎部造影 CT 画像（遅延相）左陰茎海綿体に LDA を認め（矢印）、陰茎海綿体膿瘍と診断した

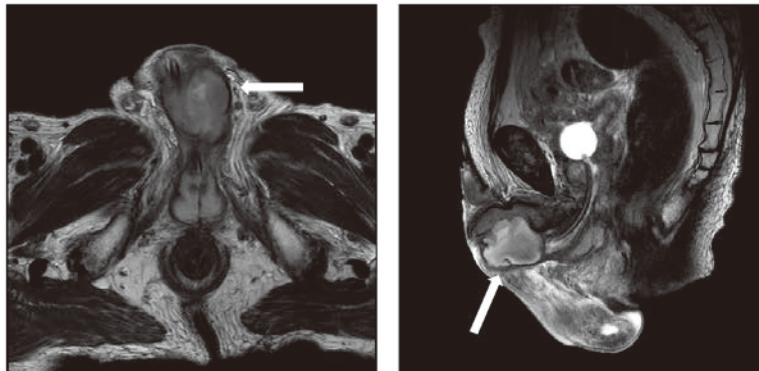


Fig.2 手術前の陰茎単純 MRI 画像（T2 強調画像）T2 強調画像で高信号を呈する病変（矢印）を認めた

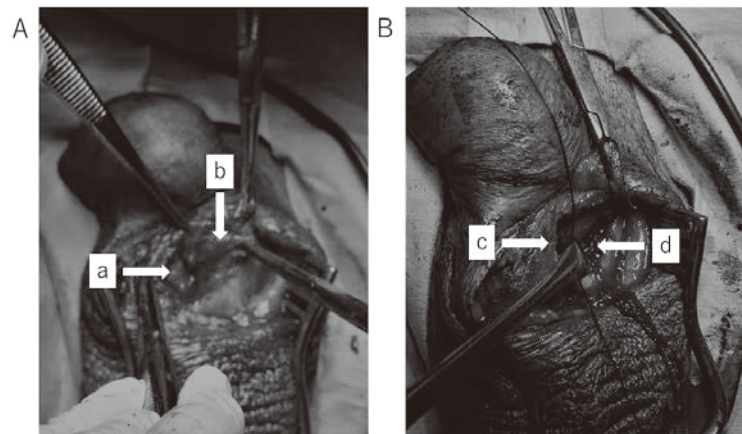


Fig.3 術中所見

A：膿瘍摘除前

尿道（矢印 a）と膿瘍壁（矢印 b）は癒着なく剥離可能であった

B：膿瘍壁摘除後 尿道はきれいに剥離、温存できた（矢印 c 金鉤にて内側に圧排しており見えず）

陰茎海綿体白膜の一部も合併切除し、陰茎海綿体が露出している（矢印 d）

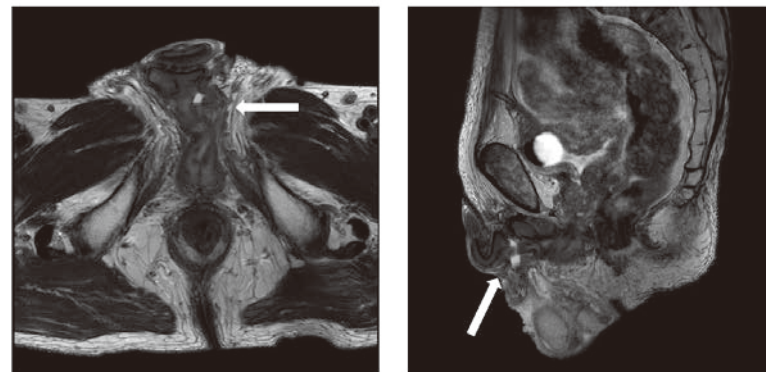


Fig.4 手術後の陰茎単純 MRI 画像（T2 強調画像）

手術前に認められていた膿瘍腔は消失している（矢印）尿道は若干偏位しているが intact である

## 症 例

# 尿路感染症を契機に発症した化膿性脊椎炎の2例

Two cases of pyogenic spondylitis resulting from urinary tract infection

豊田 朋弘<sup>1)</sup>  
Tomohiro Toyota

村中 貴之<sup>1)</sup>  
Takashi Muranaka

國島 康晴<sup>1)</sup>  
Yasuharu Kunishima

柳瀬 雅裕<sup>2)</sup>  
Masahiro Yanase

## 要 旨

化膿性脊椎炎の発症頻度は1-7人/10万人と稀な疾患であるが、近年増加傾向にある。尿路感染症を契機とした化膿性脊椎炎の2例を経験したので報告する。【症例1】80歳代男性。発熱、排尿困難を主訴に当院へ救急搬送された。尿閉に伴う腎盂腎炎と診断し、治療を開始した。初診時より腰痛、左下肢麻痺を訴え、脊椎MRIで化膿性脊椎炎を認めた。整形外科で後方除圧、後方固定を施行されたが、下肢麻痺は回復しなかった。【症例2】80歳代女性。右尿管結石による閉塞性腎盂腎炎のため救急搬送された。同日尿管ステントを留置し、抗菌薬投与を開始した。その後経尿道的尿路結石除去術を施行した。術後より高熱と腰痛の増悪を認め、脊椎MRIで化膿性脊椎炎を認めた。抗菌薬投与を継続し、症状は軽快した。【考察】化膿性脊椎炎の原因として、敗血症が最も重要である。遷延する発熱や背部痛を訴える際には本症を鑑別診断の1つとして念頭におく必要がある。

Key Word : pyogenic spondylitis, urinary tract infection

## はじめに

化膿性脊椎炎の発症頻度は1-7人/10万人とされ比較的稀な疾患であるが、医療技術の進歩や高齢化に伴い近年増加傾向にある<sup>1)</sup>。尿路感染症を契機に発症することが多く、本邦でもしばしばその報告が散見される<sup>2), 3), 4), 5)</sup>。

今回我々は、尿路感染症を契機に発症した化膿性脊椎炎の2例を経験したので、報告する。

## 症例

(症例①)

患者：80歳代男性

主訴：排尿困難、発熱

既往歴：前立腺肥大症、拡張型心筋症、慢性心房細動、高血圧、慢性腎臓病

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：2020年3月39℃の発熱、腹部膨満を主訴に近医

救急外来に救急搬送された。尿路感染症と診断されたが、尿道カテーテル留置が困難であったため、当院へ転院搬送となった。尿道造影を施行したところ振子部尿道に尿道狭窄を認めた。ブジーによる尿道拡張を施行後に8Fr腎盂バルーンカテーテルを留置した。前立腺肥大症による尿閉とそれに伴う尿路感染症、敗血症、DICと診断した。

入院時現症：BP 98/58 mmHg、BT 36.6℃、HR 75/min、RR 20/min、q-sofa 2点

入院時検査所見：WBC 26,650/ $\mu$ L、Hb 11.2 g/dL、PLT 4.5x 10<sup>4</sup>/ $\mu$ L、好中球 26,143/ $\mu$ L、CRP 25.16 mg/dL、TP 5.4 g/dL、アルブミン 2.9 g/dL、T-Bil 1.69 mg/dL、AST 23 U/L、ALT 12 U/L、BUN 63.2 mg/dL、Cre 3.65 mg/dL、eGFR 13.2 ml/min/1.73m<sup>2</sup>、Na 139 mEq/L、K 4.4 mEq/L、Cl 99 mEq/L、PT-INR 1.78、D-Dimer 2.5  $\mu$ g/mL、FDP 5.5  $\mu$ g/mL

尿検査所見：赤血球 100以上/HPF、白血球 30-49/HPF

入院後経過：入院後の主な経過を図1に示す。敗血症、

1) 砂川市立病院 泌尿器科  
Department of Urology, Sunagawa City Medical Center

2) 砂川市立病院 人工透析外科  
Department of Artificial Dialysis Surgery, Sunagawa City Medical Center

DICと診断し、MEPM 0.5 g×3/day、リコンビナントトロンボモジュリン6400単位の投与を開始した。入院当初より腰痛、下肢麻痺を訴えていたため、第2病日に原因検索を目的に脊椎MRI撮像したところ(図2)、Th7に化膿性脊椎炎と硬膜外膿瘍認められた。MRSAカバー目的にVCM 1000 mg/dayを追加した。心エコー検査では感染性心内膜炎の所見は認めなかった。第4病日に血液培養の結果が判明し*Escherichia coli*が検出されたため、CTRX 1 g × 2 / dayへDe-escalationを行った。第14病日に他院整形外科で後方除圧および後方instrumentation (Th3-10) が施行され、第102病日CRPが陰性化されるまで抗菌薬投与を継続した。治療は終了したが、下肢の麻痺は残存した。

(症例②)

患者：80歳代女性

主訴：体動困難、発熱

既往歴：糖尿病

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：2020年2月体動困難、発熱を主訴に当院に救急搬送された。右尿管結石による閉塞性腎盂腎炎と診断され、当科入院となった。

入院時現症：体温37.4℃, SpO2 99% (酸素2L), 血圧113/63 mmHg, 脈拍82/分

入院時検査所見：WBC 25,200 / μL, Hb 14.0 g/ dL, PLT 6.9x 10<sup>4</sup> / μL, 好中球 19,404 / μL, CRP 18.09 mg/ dL, TP 6.5 g/ dL, アルブミン 3.5 g/ dL, T-Bil 1.76 mg/ dL, AST 92 U/ L, ALT 30 U/ L, BUN 41.4 mg/ dL, Cre 1.54 mg/dL, eGFR 25.1 ml/min/ 1.73m<sup>2</sup>, Na 142 mEq/ L, K 3.6 mEq/ L, Cl 109 mEq/ L, PT-INR 1.60, D-Dimer 119.4 μg/ mL, DICスコア感染症型7点

尿検査所見：赤血球 100以上/HPF,白血球100以上/HPF

臨床経過：入院後の主な経過を図3に示す。CTで右腎盂尿管移行部に9mmの尿管結石を認めた。DICスコア感染症型7点(血小板2点、FDP3点、PT-INR 1点、AT-Ⅲ1点)であり、重症感染症と判断し右尿管ステント留置を施行した。その後MEPM 0.5g×3/day、リコンビナントトロンボモジュリン12800単位の投与を開始した。第4病日に血液培養、尿培養の結果が判明し*Klebsiella pneumoniae*が検出され、CEZ 1g×3/dayへde-escalationを行った。しかし、第12病日に発熱の再燃があり、CTで熱源検索するも明らかな感染源は特定できなかった。その後発熱は断続的に持続したがCRPなどの炎症反応は改善傾向にあったため第16病日に経尿道的尿路結石除去術を施行した。術中は特にトラブルなく結石は除去された。第18病日に39.2℃の発熱があり、術後の尿路感染症と考え、術前尿培養より*Enterococcus faecium*が検出されていたため感受性のあ

るTEIC 400mg/dayを開始した。その後も発熱は持続し第23病日にMEPM 0.5g×3/dayを追加した。第24病日には発熱が40℃まで上昇し、熱源検索を施行したがCT、心エコーでは明らかな以上所見を認めなかった。第25病日に脊椎MRI撮像したところTh12,L1(図4)に化膿性脊椎炎を認めた。明らかな麻痺はなくCFPM 1g×3/dayに変更した。その後も特に麻痺所見なく経過し、第64病日にMINO 100mg×2/day、RFP 150mg×3/dayに変更し、第72病日に退院となった。

考察

化膿性脊椎炎の発症頻度は、1 - 7/10万人とされ比較的稀な疾患である。罹患者は近年増加傾向にあり、原因として高齢化や画像技術の進歩、経静脈的薬物の使用の増加などが考えられている<sup>1)</sup>。リスク因子は、糖尿病が最多で悪性腫瘍や透析患者、免疫抑制患者、膠原病、アルコール障害などのcompromised hostに多いとされ、外傷や脊椎手術後患者、感染性心内膜炎(IE)なども原因の一つとされる。Akiyamaらの7118名の化膿性脊椎炎の患者を対象とした検討によれば、糖尿病が1968名(27.6%)で最多で、悪性腫瘍が1111名(15.6%)、透析542名(7.6%)であった。そのほかに脊椎手術後1537名(21.6%)、IE145名(2.0%)であった<sup>6)</sup>。

感染経路としては、各種感染症からの血行性感染が最多で外傷や整形外科手術による直接浸潤も多い。50%程度は感染の原因が特定でき、その中でも尿路感染症が最多で化膿性関節炎、皮膚・軟部組織感染症が次いで多いとされている<sup>7)</sup>。起病菌としては、黄色ブドウ球菌が最多で、大腸菌、レンサ球菌、緑膿菌、コアグラゼ陰性ブドウ球菌などが多くとされている。結核菌が原因となることもあるため、注意が必要である<sup>7)</sup>。

診断は、発熱や背部痛、麻痺などの臨床症状、血液検査、画像検査、細菌培養検査によってなされる。特に泌尿器科医にとって、尿路感染症による敗血症はしばしば経験するが、適切な感染症治療を行ったとしても、遷延する発熱や背部痛の自覚がある場合は、鑑別診断として本症を疑うことが重要である。画像検査はMRIが感度(78-90%)、特異度(60-90%)と高く特に有用である。本疾患は疑われない限り診断は困難であり、診断まで平均2か月程度要している報告が散見される<sup>7)・8)</sup>。診断が遅れると下肢麻痺など重篤な合併症が生じる可能性が高くなってしまいうため、早期にMRIなどの検索を行うことが重要である。

治療は、抗菌薬治療による保存的治療が原則であるが、麻痺など脊髄圧迫所見がある場合や、硬膜外膿瘍などドレナージを要する場合は手術適応となる。一般



に抗菌薬の治療期間は、6-8週間が推奨されている<sup>9)</sup>。治療効果判定は、4週後に行い症状の改善が乏しい場合やCRPが3mg/dL以上の場合は、治療効果不十分と考え手術や感染症専門医へのコンサルテーションが推奨されている<sup>9)</sup>。

最後に化膿性脊椎炎は稀な疾患であり、診断が困難な場合も多い。尿路感染症における敗血症はしばしば経験することであるが、遷延する発熱や炎症反応に背部痛を訴える場合には、本症を念頭におき鑑別診断を行っていくことが重要であると考えられる。

### 結語

尿路感染症を契機に発症した化膿性脊椎炎の2例経験した。敗血症患者において、遷延する発熱や背部痛を訴える際には本症を鑑別診断の1つとして念頭におく必要がある。

### 参考文献

- 1) Issa K. et al : The Epidemiology of Vertebral Osteomyelitis in the United States From 1998 to 2013. Clin Spine Surg 31:E102-E108, 2018.
- 2) 波多野浩 他 : 経尿道的前立腺切除術後に Enterobacter cloacae による化膿性脊椎炎を来した1例. 泌尿紀要 52 : 641-644, 2006.
- 3) 安東栄 他 : 前立腺生検後に化膿性脊椎炎を来した1例. 西日本泌尿器科 71: 165-168, 2009.
- 4) 松本穰 他 : 敗血症, 感染性心内膜炎, 化膿性脊椎炎を合併した前立腺膿瘍の1例. 泌尿紀要 58 : 565-568, 2012.
- 5) 竹内庸 他 : 尿路感染症を契機に感染性心内膜炎, 化膿性脊椎炎を発症した1例. 心臓 44 : 1535- 1542, 2012.
- 6) Akiyama T. et al : Incidence and risk factors for mortality of vertebral osteomyelitis: a retrospective analysis using the Japanese diagnosis procedure combination database. BMJ Open 3 : e002412, 2013.
- 7) McHenry MC. et al : Vertebral osteomyelitis: long-term outcome for 253 patients from 7 Cleveland-area hospitals. Clin Infect Dis 34 :1342- 1350, 2002.
- 8) Kapeller P. et al : Pyogenic infectious spondylitis: clinical, laboratory and MRI features. Eur Neurol 38 : 94-98, 1997.
- 9) Berbari EF. et al : 2015 Infectious Diseases Society of America (IDSA) Clinical Practice Guidelines for the Diagnosis and Treatment of Native Vertebral Osteomyelitis in Adults. Clin Infect Dis 61 : e26-46, 2015.

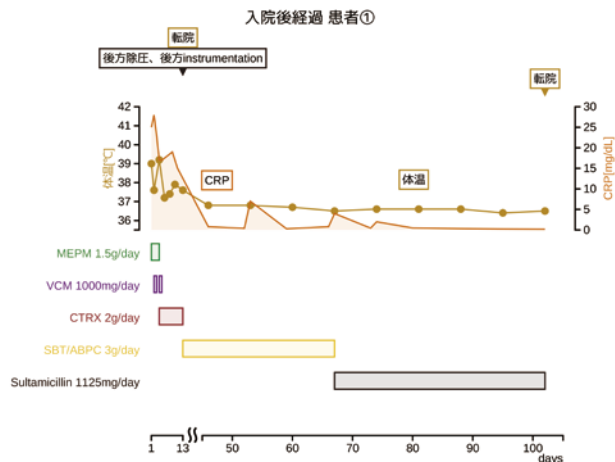


図1：症例①の入院後経過



図2：脊椎 MRI で Th7 に化膿性脊椎炎と硬膜外膿瘍の所見

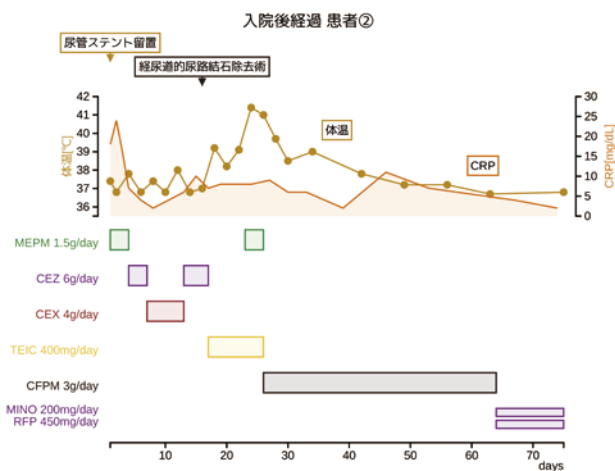


図3：症例②の入院後経過



図4：脊椎 MRI で Th12, L1 に化膿性脊椎炎の所見

## 症 例

## 印環細胞を伴う尿膜管癌の1例

A case of urachal cancer with signet ring cell

小林 元気  
Genki Kobayashi村中 貴之  
Takashi Muranaka國島 康晴  
Yasuharu Kunishima

## 要 旨

症例は70歳、女性。排尿後、ペーパーに血液が付着する事を主訴とし前医泌尿器科を受診した。膀胱炎として加療するも改善なく、膀胱鏡を施行したところ膀胱頂部に腫瘍を認めたため、手術目的に当科へ紹介・受診となった。腫瘍は膀胱癌に典型的な乳頭状腫瘍の所見ではないこと、また術前MRI・CTにて膀胱頂部に腫瘍があることから、術前から尿膜管癌が疑われた。経尿道的膀胱腫瘍切除術を施行したところ、病理結果は印環細胞を含む腺癌であり、尿膜管癌として矛盾しない所見であった。そのため後日改めて尿膜管摘除術および膀胱部分切除術を施行した。術後5ヶ月経過し、再発を認めていない。印環細胞を含む尿膜管癌はまれであり、文献の考察を行った。

Key Word : Urachal cancer, Signet ring cell

## はじめに

尿膜管は胎生期に臍と膀胱を繋いでおり、成人になると正中臍索として索状の構造物となるが、稀に癌が発生することがある。尿膜管癌は一般的に自覚症状に乏しく、診断がついた時点ですでに局所浸潤や遠隔転移をきたしていることが多い。尿膜管癌の80%以上は腺癌であり、稀に印環細胞が含まれていることがある。

今回印環細胞を含む尿膜管癌に対して、尿膜管摘除術および膀胱部分切除術を施行した1例を経験したため報告する。

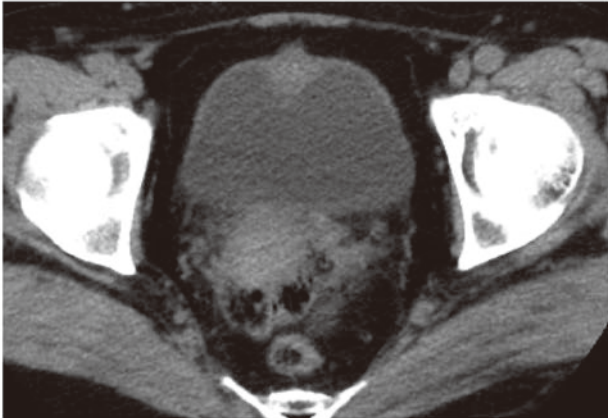
## 症例

症例は70歳女性。排尿後、ペーパーに血液が付着することを主訴に前医泌尿器科を受診した。膀胱炎として加療するも改善なく、膀胱鏡を施行したところ膀胱頂部に腫瘍を認めた。尿細胞診は陰性であった。CTでは腫瘍部の膀胱壁が不整だったため、筋層浸潤癌が疑われた(図1)。また腫瘍の局在から尿膜管癌が鑑別が上がった。明らかな転移巣は認めず、他臓器にも異常

所見は認めなかった。そのため手術目的に当科へ紹介となった。MRIでは腫瘍の膀胱壁外浸潤(cT3b相当)は確認できたが、尿膜管は同定できず、尿膜管癌の診断には至らなかった(図2)。術前にCEA、CA19-9、CA125は採取していなかった。その後当科にて経尿道的膀胱腫瘍切除術を施行した。腫瘍は膀胱頂部に存在し、非乳頭状で腫瘍周囲に粘液の付着があり、膀胱癌としては非典型的な所見であった。経尿道的手術では完全切除は困難であり、肉眼的にも筋層浸潤癌が疑われた。病理結果は印環細胞を伴う腺癌で、腫瘍が尿路上皮下に存在しており尿膜管癌に矛盾しない所見であった。そのため画像所見も踏まえて尿膜管癌の診断に至った。後日根治手術として尿膜管摘出術および膀胱部分切除術を施行した。前回手術と同様、病理結果は印環細胞を含む腺癌であり、尿膜管癌に矛盾しない所見であった。

術後5ヶ月経過した現在CT・膀胱鏡にて定期follow-up中だが、明らかな再発はなく経過している。また術後に腫瘍マーカーとしてCEA(1.48ng/ml)、CA19-9(6.77U/ml)、CA125(6.84U/ml)を確認しているが上昇は認めていない。

図1



CTにて膀胱頂部に筋層浸潤を疑う腫瘍を認める。

図2



MRIでは膀胱壁外浸潤は確認できるが尿膜管は同定できない。

## 考察

尿膜管は胎生期の尿膜に由来する遺残組織であり、成人では退縮し臍と膀胱頂部を結ぶ索状物（正中臍索）として存在する。尿膜管癌は尿膜管に発生した稀な腫瘍で、膀胱腫瘍の0.17～0.34%、原発性膀胱腺癌の20～39%を占める<sup>1)</sup>。組織学的に80%以上を腺癌が占めており、69%で粘液産生を示すことが知られており、30～60代の男性に好発する<sup>1)</sup>。本症例は組織に印環細胞が含まれていたが、印環細胞癌は腺癌の亜型であるため、尿膜管は印環細胞癌の発生母地として矛盾しない。印環細胞癌を含む尿膜管癌には、印環細胞のみが広がるびまん性と、他成分も混在する混合型の2つ

に分類される。印環細胞を含む尿膜管癌は、尿膜管癌全体の6.7%とする報告もあり、比較的稀である<sup>5)</sup>。予後については尿膜管癌全般の5年生存率は50%であったのに対して、印環細胞癌を伴う尿膜管癌では5年生存率が27%との報告があるが、報告数が少ないため今後の検討が必要である<sup>5)</sup>。自覚症状に乏しく進行した状態で発見されることが多いが、発見時の症状として肉眼的血尿が最多で74.1%を占める。他には膀胱刺激症状（排尿時痛、頻尿、残尿感）、下腹部腫瘍、疼痛、粘液排出などを来すことがある<sup>2)</sup>。腺癌のため腫瘍マーカーとしてCEA、CA19-9、CA125等が上昇することが知られているが、特異的なものはない。本症例では術前にマーカーを確認していなかったが、術後は上昇ないため病勢はコントロールされているものと推測される。

尿膜管癌は膀胱原発腺癌としばしば判別困難な場合があり、そのため診断基準としてMDアンダーソンがんセンターの診断基準を推奨していることが多い。

①腫瘍が膀胱頂部あるいは膀胱の中線に沿って存在する。

②腫瘍と正常尿路上皮との境界が明瞭である。

補助診断基準：腸管様組織像である・尿路上皮異形成を認めない・嚢胞性膀胱炎あるいは腺性膀胱炎を認めない・他臓器に腺癌の原発を認めない

上記基準を満たした場合、尿膜管癌と診断できる<sup>3)</sup>。本症例では上記基準を全て満たしており、尿膜管癌として矛盾しなかった。StagingにはSheldon分類が用いられることが多い（表1）。前述の通り進行した状態で発見される場合が多く、StageⅢあるいはⅣが大半を占める<sup>4)</sup>。

表1

Sheldon分類	
I	尿膜感を越える浸潤なし
II	尿膜管に限定された浸潤
III	局所進展
A	膀胱
B	腹壁
C	腹膜
D	膀胱以外の臓器
IV	遠隔転移
A	局所リンパ節
B	遠隔転移

Sheldon分類



治療方針として遠隔転移がない場合、外科的切除が施行されることが多く、尿膜管摘除と膀胱全摘を施行する場合や、術後のQOLを考慮し尿膜管摘除と膀胱部分切除を選択する場合もある<sup>3)</sup>。十分なmarginを確保すれば再発率には優位差はないとされている。また症例により臍の合併切除も考慮される。一方切除不能あるいは転移症例に対しては、消化器腺癌に準じて化学療法（TS-1/CDDP併用療法、FOLFOX、IRIS等）が用いられることが多い<sup>1)</sup>。印環細胞癌を伴う尿膜管癌の治療方法は通常の尿膜管癌と同様に、転移がない場合外科的切除が施行される場合が多いが、切除不能あるいは転移症例に対しては化学療法を施行した報告は少なく、今後の報告が期待される<sup>5)</sup>。

## 文献

- 1) 小澤迪喜 他：術後化学療法としてTS-1/CDDP併用療法を施行した尿膜管癌の2例. 泌尿紀要63：413-419, 2017.
- 2) 山田浩史 他：鑑別困難であった尿膜管癌の1例. 泌尿器外科28(10)：1727-1730, 2015.
- 3) 渡邊絢子 他：当院で経験した尿膜管癌の5例. 泌尿器外科27(3)：411-415, 2014.
- 4) 井上克己 他：術後補助化学療法としてTS-1/CDDP併用化学療法を施行した尿膜管癌の1例. 泌尿紀要61：441-443, 2015.
- 5) 松村英理 他：印環細胞癌を伴う尿膜管癌の2例. 西日泌尿74：454-459, 2012.

## 症 例

# 広範型肺血栓塞栓症の発症を契機に プロテインS欠損症と診断された一例

A case of protein S deficiency diagnosed as a result of extensive pulmonary thromboembolism

田村 俊文<sup>1)</sup> 中島 孝之<sup>2)</sup> 蔦屋 美寿季<sup>2)</sup> 松谷 健一<sup>2)</sup>  
Toshifumi Tamura Takayuki Nakajima Mizuki Tsutaya Kenichi Matsutani

水上 和也<sup>2)</sup> 清水 紀宏<sup>2)</sup> 平林 高之<sup>2)</sup>  
Kazuya Mizukami Norihiro Shimizu Takayuki Hirabayashi

## 要 旨

症例は42歳、女性。失神と胸痛あり、前医に搬送、広範型肺血栓塞栓症の診断となり、治療開始をし、全身管理目的に当院へ転院搬送となった。特に誘因なく発症し、突然死の家族歴があったことから先天性の血栓素因を疑い、検索したところ、プロテインS抗原量と活性値の低下を認め、先天性プロテインS血栓症が疑われた。しかし、抗凝固薬内服中で血栓症急性期であったため、薬理学特性などを考慮し、慢性期に再検し、改めてプロテインS抗原量と活性値が低下していることを確認してから先天性プロテインS欠損症の確定診断を行った。

Key Word : massive pulmonary embolism. Protein S

## はじめに

肺血栓塞栓症などの血栓症などの原因の一つに先天性の血栓素因があり、先天性プロテインS欠損症もその一部である。先天性プロテインS欠損症はプロテインSの抗原量と活性値の検査で診断がつくが、血栓症患者では抗凝固薬を使用していることが多く、その薬理学的作用により検査値が修飾されることがある。また血栓症急性期でもこれらの値が修飾されることがあると報告されている。診断にはこれらのことを考慮し、場合によっては再検や薬物の使用を一時中止する必要がある、文献学的考察を加えて報告する。

## 症例

患者：42歳、女性

主訴：呼吸苦、失神

既往歴：虫垂炎（学童期）、流産歴なし

家族歴：父親の家系で若年死、突然死の家族歴が複数あり（詳細不明）。

飲酒歴：なし

現病歴：入院2ヶ月前から左下腿の疼痛が出現し、発赤

や腫脹は認めなかったが、持続したため近医の整形外科を受診し、鎮痛薬を処方され帰宅となった。その後疼痛は自制内となっていた。骨折や臥床などの病歴はなかった。入院3日前の昼頃に自宅で座位になっているときに吸気時の左胸部痛を自覚し、夜間にかけて疼痛は増悪した。入院2日前も胸痛は持続していたが、自宅で様子を見ていた。入院前日、胸痛が持続するため近医（個人クリニック）を受診した。胸部レントゲンで左下肺野に浸潤影を認めたため、肺炎の可能性が高いとのことでさらに近くの専門病院（前医）に紹介となった。そこで胸部CTを撮像し、同部位に浸潤影を認め、入院を勧められたが、外来治療の希望があり、レボフロキサシンを処方され帰宅となった。その翌日起床後に突然の呼吸苦あり、その後一過性意識消失も認められた。胸痛もあり鎮痛薬を服用し、様子を見ていたが、夕方に胸部圧迫感を自覚し、程度が強いため救急要請し、前医へ救急搬送となった。前医到着時ショックバイタルであり、造影CTを撮像したところ両肺動脈主幹部に血栓を認め、広範型肺血栓塞栓症と診断し、モンテプラゼ、ヘパリン、ドパミンを投与開始となった。その後全身管理目的に当科へ転院搬送となった。

1) 市立釧路総合病院 心臓血管内科  
Department of Cardiovascular Medicine, Kushiro City Medical Center

2) 砂川市立病院 循環器内科  
Department of Cardiovascular Medicine, Sunagawa City Medical Center

主な入院時現症：身長151.0cm、体重70.3kg。体温36.4℃。BP 123/87mmHg。PR117回/分（整）。呼吸数25回/分。SpO<sub>2</sub>：100%（リザーバーマスク6L）。眼瞼結膜貧血はなし、眼球結膜に黄疸はない。心音：整で雑音は聴取しない。呼吸音：清で左右差を認めない。両下肢：発赤・腫脹は認めない

検体検査（表1）：D-dimer、肝酵素、トロポニンIの上昇を認めた。スクリーニングでの検査でプロテインS抗原量（全抗原量）、活性値の低下を認めた（表2）。

胸部X線写真（臥位、図1）：心胸郭比70%、浸潤影は認めない

安静時心電図（図2）：HR109/min、洞調律、Ⅲで異常Q波、完全右脚ブロック、V1-4で陰性T波を認める。心臓超音波検査（図3）：右心室の拡大は著明で左心室はD-shapeであった。左心室に壁運動異常は認めなかった。

造影CT：（図4）両側肺動脈主幹部に血栓を認める。左下肺野に浸潤影を認める。両大腿静脈に血栓を認める。

## 経過

当院到着時は前医にてモンテプラゼが投与された後であり、ショックバイタルから回復し、意識は清明であった。カテーテル治療や外科的血栓除去術、PCPSなどの更なる介入は不要と考え、PEとDVTに対して開始量としてアピキサバン10mg1日2回の内服を開始とし、ICUに入室した。その後も血圧低下や酸素化低下などは認めず、入院2日目に再撮像した造影CTでは肺血栓の残存はあるものの消退傾向であった。入院3日目にはICUを退室した。入院9日目には維持用量としてアピキサバン5mg1日2回に変更とした。入院10日目に3回目の造影CTを撮像したところ両肺動脈主幹部の血栓はほとんど消失しており、血栓は第2分岐以降に認めるのみであった。特に症状もなく経過したため、アピキサバンの内服を継続する方針とし、入院12日目に自宅へ退院となった。入院時の採血にてプロテインS抗原量、活性値がともに低下しており、父親の家系で若年死や突然死が複数あったため、先天性の血栓素因としてプロテインS欠損症が疑われた。発症約2ヶ月後の外来で再度、プロテインS抗原量と活性値を再検したところ、やはり両者とも低下しており、先天性プロテインS欠損症と診断した。患者は2児の母であり、子供らは無症状であったが、患者と相談し、児らのプロテインS抗原量と活性値を測定した。2児とも両測定値とも正常値であり、経過観察としている。またその後、患者は血栓症なく経過している。

## 考察

本症例は中年女性にmassive PEを契機にプロテインS欠損症が発見された一例である。プロテインSは主に肝細胞で生成されるビタミンK依存性の糖蛋白であり、プロテインCとともに凝固系を抑制する、その機序としてはVaとⅧ因子を抑制することと線溶系を亢進させプロトロンビンを阻害する作用の2つによるものとされている。プロテインS欠損症はPROS1遺伝子の変異によって起こる常染色体優性遺伝の疾患であり、PS抗原量とPS活性の量によりtype1-3に分類される（表3）。抗原量は正常で活性のみが低下するtype2は稀で多くが抗原量、活性ともに低下するtype1と3であると報告されている。プロテインS欠損症患者では凝固異常による合併症を経験するのは約半数と言われており、その他の患者では無症状で一生を過ごすと言われてい

る。プロテインS欠損症の診断はプロテインSの抗原量と活性値でなされるが、抗凝固薬内服中や血栓症急性期では検査結果が修飾される場合があるとされる。抗凝固薬に関してはワルファリン、トロンビン阻害薬、Xa阻害薬、ヘパリンでそれぞれのプロテインS抗原量と活性値に対する薬理作用が検討されている。ワルファリンは抗原量、活性値ともに偽低値に修飾する。DOACではトロンビン阻害薬、Xa阻害薬ともに抗原量は修飾しないが、Xa阻害薬では活性値を偽高値に修飾するとされる。トロンビン阻害薬では活性値を修飾しない。ヘパリンは抗原量、活性値ともに修飾しないとされている（表4）。

また、血栓症急性期に関してもプロテインS抗原量や活性値に影響すると考えられている。血栓症急性期には消費性にプロテインSが低下するため、検査結果の信頼性は低いと考えられ、慢性期に再検するべきである。

以上を踏まえ、先天性プロテインS欠損症の診断においては抗凝固薬の使用状況や発症時期などを考慮し、確定診断のための検査を行うべきである。



RBC	462	万/ $\mu$ L	$\gamma$ -GTP	54	IU/L	Na	135	mEq/L
Hb	12.5	g/dL	BUN	15.8	mg/dL	K	4.1	mEq/L
Ht	37.5	%	Cr	0.68	mg/dL	Cl	104	mEq/L
MCV	81.2	fl	UA	4.9	mg/dL	CRP	8.16	mg/dL
WBC	8300	$\mu$ L	Glu	130	mg/dL	BNP	137.9	pg/mL
Plt	9600	$\mu$ L	HbA1c	6	%	TSH	0.98	$\mu$ IU/ml
TP	5.8	g/dL	TChol	171	mg/dL	FreeT3	1.95	pg/ml
Alb	2.8	g/dL	TG	106	mg/dL	FreeT4	1.3	ng/ml
Tbil	0.74	mg/dL	LDL	115	mg/dL	PT-INR	1.22	
AST	45	IU/L	HDL	31	mg/dL	APTT	32.4	秒
ALT	474	IU/L	TropI	0.499	ng/mL	Fbg	160	pg/ml
LD	1304	IU/L	CK	85	U/L	D-dimer	216.9	ng/ml

表 1. 入院時採血結果

ループスアンチコアグラント	陰性
抗カルジオリピン抗体	陰性
プロテインC抗原	69%
プロテインC活性	77%
プロテインS抗原 (total)	41%
プロテインS活性	18%

表 2. 入院時血栓素因スクリーニング結果

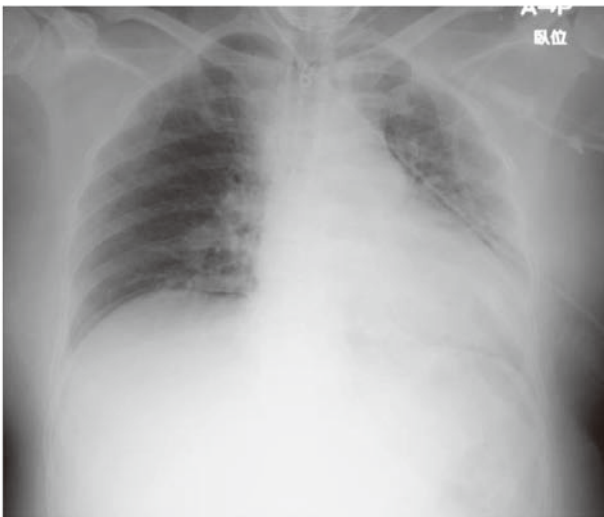


図 1. 胸部レントゲン：著明な心拡大を認め

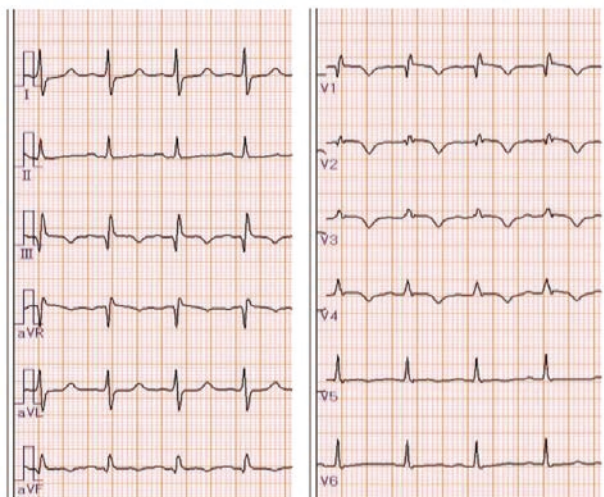


図 2. 12誘導心電図：右脚ブロック，S I Q III T III, V 1-4 陰性 T 波

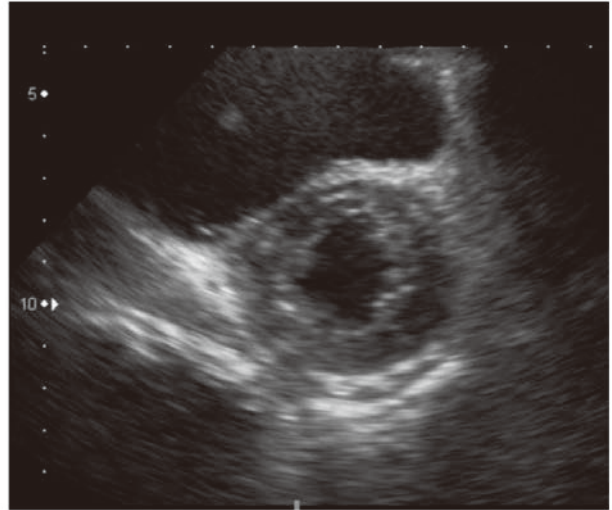


図 3. 心エコー：著明な右心室拡大

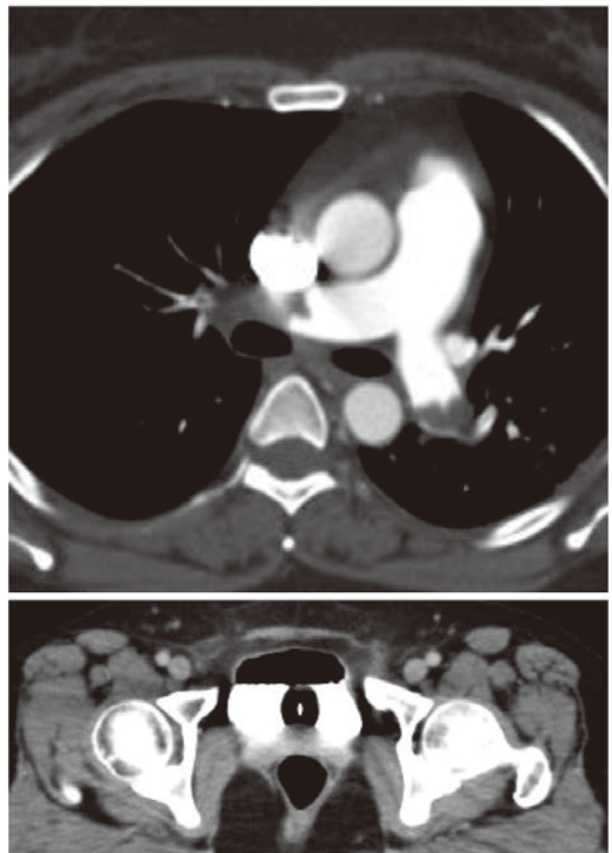


図 4. 造影 CT：両肺動脈主幹部，両大腿静脈に血栓を認める。

	Total PS	Free PS	Function of PS
Type I	↓	↓	↓
Type II	→	→	↓
Type III	→	↓	↓

表 3. 先天性プロテイン S 欠損症 type1-3

	PS抗原量	PS活性値
Xa阻害薬	○	× (↑)
トロンビン阻害薬	○	○
ワルファリン	× (↓)	× (↓)
ヘパリン	○	○

表 4. 抗凝固薬のプロテイン S 抗原量，活性値に対する影響：

## 引用文献

- 1) T Nakayama et al : プロテインS欠乏症. 血栓止血誌 12(3):235-239,2001
- 2) Alameddine et al : Diagnosis and management of congenital thrombophilia in the era of direct oral anticoagulants. *Thrombosis Research* 185 (2020) 72-77
- 3) D'angelo et al : Acquired deficiencies of protein S. Protein S activity during oral anticoagulation, in liver disease, and in disseminated intravascular coagulation. *J Clin Invest.* 1988 May; 81(5): 1445-1454
- 4) Minuk et al : Normal levels of protein C and protein S tested in the acute phase of a venous thromboembolic event are not falsely elevated. *Thrombosis Journal* 2010, 8:10

## 研究

# 当科における腸重積症25例の検討

A study of 25 cases of intussusception in our department of pediatrics

瀬越 尚人<sup>1)</sup> 矢吹 郁美<sup>1)</sup> 大野 真由美<sup>2)</sup> 近藤 謙次<sup>1)</sup> 菊地 成佳<sup>1)</sup>  
Hisato Segoe Ikumi Yabuki Mayumi Ono Kenji Kondo Masayoshi Kikuchi

## 要 旨

腸重積症は、乳幼児期に発症する小児腹部救急疾患である。多くの症例で非観血的整復が可能であるが、診断が遅れると開腹、時に壊死腸管切除が必要になるため、早期診断および治療が重要である。当科で過去14年間に経験した25症例について、腸重積症の臨床的特徴を明らかにする目的で症例の検討を行った。初診時に腸重積症の三主徴（腹痛または不機嫌、嘔吐、血便）を認めた症例は2例（8%）と少なかった。また、観血的整復を要した3症例について、すべての症例で器質的疾患を有していた。そのため、非観血的整復が成功しない症例には、器質的疾患の可能性を考慮した精査および治療が必要であると考えられた。

Key Word : Intussusception, abdominal pain, vomiting, bloody stool

## はじめに

腸重積症（以下、本症）は小腸または大腸の一部の口側腸管が肛門側腸管に嵌入することで腸閉塞症状や腸管の血行障害を引き起こす疾患であり、小児の代表的な腹部救急疾患である。先進部の重積腸管が腸蠕動により、口側から肛門側へ進んでいくとともに、重積により巻き込まれた腸間膜が圧迫されて血流が障害され、腸管の浮腫が進行し粘膜出血による下血が生じ、やがて腸管壊死に至る。進行すれば、不機嫌や間欠的腹痛から高度の腹痛と嘔吐へと増悪し、開腹手術が必要となるので、早期診断が極めて重要である。

今回当科において経験した本症25例について検討し、臨床的特徴について解析したため、文献的考察を加えて報告する。

## 材料と方法

2007年1月より2021年2月の間に、当科にて入院加療歴のある腸重積症例25例について、電子診療録を用いて後方視的に検討した。診断について、日本小児救急医学会による「エビデンスに基づいた小児腸重積症の

診療ガイドライン」に基づき、腹痛や血便などの臨床症状に加えて、腹部超音波検査でtarget sign (図1) あるいは下部消化管造影検査で蟹爪様陰影 (図2) を認めた場合に、本症と診断した。

臨床的特徴については性別、年齢、主訴、診断までの受診回数、便中病原体の有無、治療方法、器質的疾患の有無について、検討した。

## 結果

当院で診断した本症25例について表に示す。

### 1. 性別および発症年齢

性別は男児19例、女児6例で男女比3.1と男児に多かった。発症年齢は生後2ヶ月から11歳（年齢中央値1歳8ヶ月）であった。1歳未満が7例（28%）、2歳未満が15例（60%）と半数以上を占めた。学童期に発症した例が3例（12%）含まれていた。

### 2. 主訴

三主徴（腹痛または不機嫌、嘔吐、血便）のすべてを呈した例は、2例（8%）であった。最多の主訴が間欠的腹痛または不機嫌で22例、全体の88%を占めた。次に多い主訴が血便で14例（56%）、次いで嘔吐が9例

1) 砂川市立病院 小児科  
Department of Pediatrics, Sunagawa City Medical Center

2) 北海道立子ども総合医療・療育センター  
Hokkaido Medical Center For Child Health And Rehabilitation



(36%)であった。

### 3. 診断までの受診回数

初回の受診で診断がついた例が18例(72%)であった。一方、7例(28%)は2回目以降の受診で本症の診断となった。

### 4. 便中病原体の有無

入院時の便検査で、5例(40%)がアデノウイルス陽性であった。また1例で便培養から、*Yersinia enterocolitica*が検出された。

### 5. 治療方法

すべての症例で、初期治療として高圧浣腸による非観血的整復術を施行した。22例(88%)は非観血的整復術で整復可能であったが、3例(12%)は整復不能であり、高次医療機関に搬送し、観血的整復術が施行された。

### 6. 器質的疾患の有無

3例(12%)が器質的疾患を有していた。内訳は1例がMeckel憩室、2例が若年性ポリープの診断であった。また、器質的疾患のあった3例は、全て観血的整復術が施行された。

## 考案

本症は新生児から成人まで広い年齢層で発症するが、小児においては生後6か月~2歳の乳幼児に好発する<sup>1)</sup>。1歳未満で65%、2歳未満で80~90%が発症し、男女比は約2:1とされる<sup>2)</sup>。自験例での検討では、年齢中央値1歳8ヶ月で、男女比3.1であり、既知の報告と比較すると、発症年齢は概ね一致する一方で、男児に多い結果であった。

本症の三主徴は腹痛または不機嫌、嘔吐、血便とされるが、三主徴全てを呈する症例は少なく10%以下という報告もある<sup>3)</sup>。今回の25症例においても、来院時の症状で三主徴の全てを認めた例は2例のみであった。このように典型的な症状が全て揃って来院する場合は少なく、診断に難渋することも多い。本症の初発症状は腹痛の頻度が最も高く、次いで嘔吐を伴う頻度が高い。臨床症状のみで診断が困難な場合、浣腸を行い血便の有無を確認し、場合によっては便潜血反応を確認することが本症の診断に有用である。

初回の受診で本症の診断となった例は18例(72%)であったが、7例(28%)が2回目以降の受診で本症の診断となった。7例について考察すると、好発年齢から外れる例が4例(うち学童期が3例)、嘔吐のみを主訴で受診した例が2例であった。嘔吐のみで受診した場合の初期診断は急性胃腸炎とされ、本症が胃腸炎の初期症状と誤診されることも少なくないことがわかる。また好発年齢を外れた場合は、初回到超音波検査が施行されておらず、好発年齢以外の児で本症をいかに想起

するかが重要な点といえる。

前駆症状として上気道炎症状や胃腸炎症状を有する症例が多いことから、本症において先行感染の関与が指摘されている<sup>4) 5)</sup>。先行感染に伴う腸管浮腫が本症の誘因と考えられており、自験例ではアデノウイルス腸炎を併発した例が5例(40%)であった。20~40%にアデノウイルス感染を合併すると報告されており<sup>6)</sup>、既知の報告と概ね一致する結果であった。細菌性腸炎合併については本症のリスクファクターとの記載はあるものの<sup>6)</sup>、合併例の報告は本邦では少ない。当院で経験したエルシニア腸炎については、成人での腸重積合併例の報告はあるものの<sup>7)</sup>、小児での報告は少なく、稀有な症例であったといえる。

治療方法については、発症後、概ね48時間以内で全身状態が良好な場合には、非観血的整復を試みる。腹膜刺激症状を認める例や穿孔が疑われる例は観血的整復を選択すべきであるが、発症から48時間以上経過している場合や発症時間が不明でも、全身状態が比較的良好な例では、ドプラ超音波検査で血流が確認できれば非観血的整復を試みてもよい。整復方法は施設によって様々であり、実際の手技としては空気整復、生理食塩水による超音波検査下整復および水溶性造影剤を用いた透視下整復がある。当院では全例で水溶性造影剤を用いた透視下整復を行っている。既知の報告では、約90%が非観血的整復術により治療するとされ<sup>6)</sup>、自験例でもほぼ一致する結果となった。

観血的整復術が施行された3例(12%)については、2ヶ月、1歳3ヶ月、3歳1ヶ月の男児であった。これら3例はすべてが器質的疾患を有していた。器質的疾患は成人では50~80%に認めるのに対し、小児では2~9%程度と報告されており<sup>5) 8)</sup>、小児における腸重積症の成因としては、病的先進部を有さない特発性が多いとされる。自験例での器質的疾患の内訳は1例がMeckel憩室、2例が若年性ポリープの診断であった。器質的疾患については、主に症例報告として多種多様なものが報告されている<sup>8)</sup>。比較的頻度の多い疾患として、Meckel憩室、若年性ポリープ、バイエル板肥厚、腸管重複症などがある。小児では特発性腸重積がほとんどであるが<sup>5)</sup>、非観血的整復術で整復できない場合には、原因に器質的疾患がある可能性を考慮し、自施設で観血的整復が行えない場合は外科的治療が行える高次医療機関などに搬送する必要があるといえる。

## 結語

自験例では、既知の報告に比べて、発症は男児に多かった。また、三主徴全てを認めた症例は10%未満であった。観血的治療を行ったすべての症例で器質的疾患を認めたため、非観血的整復術で整復できない場

合には、器質的疾患の可能性を考慮した精査および治療が必要であると考えられた。

## 文献

- 1) 市川光太郎, 天本正乃 編: 内科医・小児科研修医のための小児救急治療ガイドライン. 改訂第4版, 診断と治療社, 東京, 2019.
- 2) 松尾吉庸: 腸重積症. 岡田正 編: 系統小児外科学 (第一版). 521-525, 永井書店, 大阪, 2001.
- 3) 光藤伸人: 腸重積症の診断上の問題点. 日小外会誌, 31: 455-458, 1999.
- 4) 仁科孝子, 土田嘉昭, 齊藤純夫, 他: 腸重積症の病因: 特にPeyer板肥厚について. 小児外科, 13: 597-604, 1981.
- 5) 三松謙司, 大井田尚継, 西尾知, 他: 小児腸重積症の臨床的検討: 当科で経験した713例について. 日小外会誌, 34: 1023-1028, 1998.
- 6) 日本小児救急医学会: エビデンスに基づいた小児腸重積症の診療ガイドライン. 日本小児救急医学会ガイドライン作成委員会編, へるす出版, 東京, 2012.
- 7) 土橋寛之, 三浦則正, 堀田稔, 他: エルシニア腸炎による成人腸重積の1例. 太田病年報 25: 67-70, 1990.
- 8) 中村資朗, 頼明信, 山本泰雄, 他: 腸重積症の病因: その器質的病変について. 小児外科, 13: 605-609, 1981.

図1. 腹部超音波検査. target sign. (表22児, 実際の所見)

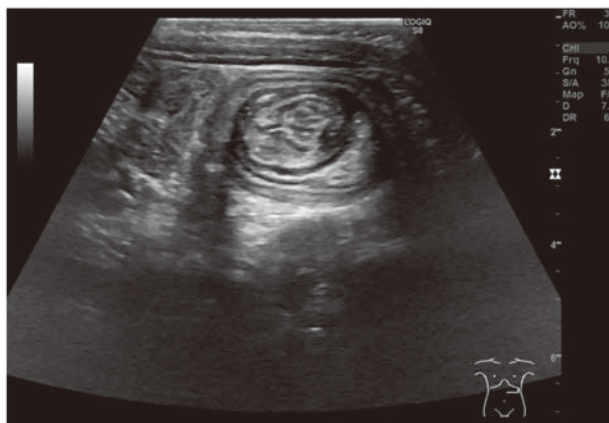


図2. 下部消化管造影検査. 蟹爪様陰影. (表25児, 実際の所見)



表

	年齢	性別	腹痛	嘔吐	血便	受診回数	便中病原体	転機
1	2m	男	-	+	-	1回	-	非観血的治療で整復
2	11m	男	+	+	-	1回	-	非観血的治療で整復
3	11y	男	+	-	-	2回	-	非観血的治療で整復
4	1y3m	男	+	-	+	1回	-	観血的治療で整復 Meckel 憩室を合併
5	1y8m	男	+	-	-	1回	-	非観血的治療で整復
6	1y10m	男	+	-	-	1回	-	非観血的治療で整復
7	8m	男	-	+	+	2回	-	非観血的治療で整復
8	10m	女	+	-	+	1回	-	非観血的治療で整復
9	1y6m	男	+	+	+	1回	-	非観血的治療で整復
10	2y10m	男	+	-	+	2回	+	非観血的治療で整復
11	7m	女	+	-	+	1回	-	非観血的治療で整復
12	2y8m	男	+	-	+	1回	-	非観血的治療で整復
13	2y1m	女	+	+	-	1回	-	非観血的治療で整復
14	8m	男	-	+	+	1回	-	非観血的治療で整復
15	9y	男	+	-	+	3回	-	非観血的治療で整復
16	1y9m	男	+	-	-	1回	+	非観血的治療で整復
17	1y2m	女	+	-	-	1回	-	非観血的治療で整復
18	7y	男	+	+	-	2回	+	非観血的治療で整復
19	1y	男	+	+	+	2回	-	非観血的治療で整復
20	2y11m	男	+	-	+	1回	-	非観血的治療で整復
21	2y9m	女	+	-	-	1回	+	非観血的治療で整復
22	2m	男	+	+	-	2回	-	観血的治療で整復 若年性ポリープを合併
23	3y3m	男	+	-	+	1回	-	非観血的治療で整復
24	3y1m	男	+	-	+	1回	-	観血的治療で整復 若年性ポリープを合併
25	1y6m	女	+	-	-	1回	+	非観血的治療で整復