症例報告 II

治癒後 10 年目に再燃し、Fournier 症候群へ移行した慢性臀部膿皮症の 1 例

八木 寛 小林 孝 渡邊 隆興 田中 花菜

新潟臨港病院外科

症例は 72 歳男性，痔瘻を合併する慢性臀部膿皮症として当科で膿皮切除，瘻管切開術，シートン術を施行し，治癒となった．治癒後 10 年目に臀部の瘻孔からの排膿を主訴に外来を受診した．CT・MRI で会陰・仙骨前面にガス像を伴う皮下膿瘍を認め，急速に増悪する臀部痛を認めたことから Fournier 症候群と診断し，緊急手術を施行した．術後所見では痔瘻の再発・新規病変は認められなかった．慢性臀部膿皮症は毛孔閉塞に起因する感染を反復することによって生じる慢性皮膚障害であり，病変の主座は皮下であることが多い¹⁾．一方 Fournier 症候群は痔瘻・痔核などの肛門疾患を背景として発生する会陰，肛門周囲を中心とした劇症型の壊死性筋膜炎として知られている²⁾．本症例は皮下病変が中心である慢性臀部膿皮症が治癒後長期間を経て再燃し，壊死性筋膜炎である Fournier 症候群へ移行した稀な 1 例と考えられた．

索引用語：Fournier 症候群，慢性臀部膿皮症

はじめに

Fournier 症候群は会陰，肛門周囲を中心とした急速に悪化する劇症型の壊死性筋膜炎として知られている²⁾．糖尿病などを合併した易感染性状態を背景に，痔瘻や痔核などの肛門疾患の術後に生じることが多い．今回慢性臀部膿皮症が治癒後 10 年目に急速に再燃・増悪し，Fournier 症候群へ移行した稀な 1 例を経験したため報告する．

症 例

症例：71 歳，男性．

現病歴：1994 年 11 月約 10 年前からの臀部皮膚腫脹，排膿，疼痛を主訴に近医より当科紹介となった．両側臀部から会陰・大腿にかけての広範な慢性臀部膿皮症を認めた．一時的人工肛門造設術施行の後，3 度にわたる膿皮切除，瘻管開放術を施行した．1995 年 7 月創部の癒着化を確認した．術後病理診断では炎症性癒着を認めるのみで，悪性所見，ならびに炎症性腸疾患の合併は認められなかった．その後外来受診はなかったが，2005 年 7 月に臀部左側の排膿を主訴とする症状の再燃を認め外来を受診し，MRI で III 型痔瘻および慢性臀部膿皮症の再燃と診断された．同年 8 月シートン術を施行した．肛門 6 時方向に認

めた 2 次孔周囲に円形に皮膚切開を置き，膿瘍腔へ到達，6 時の一次孔と連続する瘻孔を確認し，シートン術を施行したほか，9 時方向に 2 ヶ所開口する二次孔へ膿瘍腔からそれぞれドレナージシートン術を施行した．臀部左側壁を中心に再燃していた臀部慢性膿皮症に対しては可及的にドレナージシートン術を施行した．2009 年 12 月までにシートンをすべて抜去し，排膿などの自覚症状の消失を確認し，2010 年 4 月に終診となった．人工肛門は患者本人の希望で閉鎖しなかった．2019 年 3 月に臀部痛，皮膚の硬結，腫脹，排膿を主訴に再診した．発熱などの全身症状はみられず慢性臀部膿皮症の再燃として抗生剤内服により外来経過観察のうえ待期的に手術予定としていた．2019 年 4 月，臀部痛の悪化や，発熱，倦怠感，などの全身状態悪化を認めたため緊急入院となった．急速なガス像の拡大や，臀部痛の悪化のほか，全身的な中毒症状の出現などから Fournier 症候群への移行と判断し緊急手術を施行した．

既往歴：糖尿病，右鼠径ヘルニア．**家族歴：**特記事項なし．

入院時現症：肛門 6 時方向からの排膿を認め，肛門部から尾骨部にかけての疼痛を認めた．直腸指診では尾骨前面に圧痛を認めた．

入院時血液検査所見：白血球数 16,100/ μ L，CRP

図 1 腹部骨盤部 CT 所見

図 2 手術所見

15.7mg/dl と著明な炎症所見を認めた。そのほか HbA1c 7.4%, 尿糖 4+ と耐糖能異常を認めた。

腹部骨盤部 CT 所見：尾骨から仙骨背側の皮下にガス像を伴う膿瘍形成を認めた。ガス像は臀部・大腿まで及んでいた (図 1 a-c)。

手術所見：全身麻酔下に緊急ドレナージ術を施行した。皮膚の発赤、腫脹は尾側は臀部から大腿内側に始まり、頭側は体幹背部中ほどまで及んでいた。ジャックナイフ体位で尾骨背側の皮下膿瘍直上で円状に皮膚切開を置き、膿瘍腔をドレナージし、悪臭を伴う排膿を多量に認めた。膿瘍腔頭側の胸腹筋膜は広範に壊死していたが、筋層への炎症の波及はみられなかった。壊死筋膜をデブリードマンしたのち、創部を洗浄、膿瘍開放部に対しペンローズドレナージを用いたループドレナージを行った。痔瘻の再燃、新規発生は認められなかった。術中採取した検体より *Streptococcus milleri*, および嫌気性グラム陰性桿菌、嫌気性グラム陽性球菌が検出された (図 2 a, b)。

術後経過：第 1 病日より炎症所見は速やかに消退し、呼吸循環動態も安定した。連日創部の残存壊死

組織のデブリードマンを行い、術後 2 日目より経口摂取を開始した。術後経過は良好で術後 15 日目に退院した。創の上皮化は良好で術後 3 ヶ月が経過した現在順次ペンローズドレナージを抜去しつつ経過観察中であるが再燃の徴候はみられていない (図 3 a, b)。

考 察

Fournier 症候群は 1983 年に Fournier によって、若年男子に発症する原因不明の陰囊壊疽として報告された²⁾。現在では会陰を主座として急速に拡大する壊死性筋膜炎がその本態とされており、糖尿病をはじめとした基礎疾患などを持つ患者で生じやすいことが知られている³⁻⁶⁾。進展様式により体表主体に病巣が広がる外攻型と、後腹膜・肛門挙筋頭側の腹膜外主体に広がる内攻型に分類され、特に内攻型は典型的な皮膚所見に乏しく、治療が遅れがちとなり予後も不良となることが多い⁷⁾。

一方臀部慢性膿皮症の本態は化膿性汗腺炎であり、毛孔が閉塞し感染を反復する慢性皮膚障害である¹⁾。岩垂ら⁸⁾は「肛門周囲の皮膚が厚く、硬く肥厚、

図 3 術後経過

隆起し、膿汁排出を伴う発赤と腫脹を伴う一群の疾患」としている。皮下に瘻管が複雑に交通し、周囲を肥厚した線維組織が覆うことなどから、抗生剤が奏効しづらく⁹⁻¹²⁾、治療は罹患部の全切除による治療が行われるが慢性的に再発を繰り返すことも多い。

本症例も 15 年にわたり軽快、再燃を繰り返した臀部慢性膿皮症であった。治癒と判断された後 10 年目に臀部皮膚の硬結、腫脹、ならびに排膿を主訴とする膿皮症の再燃で外来を受診した。待期的に手術の方針としていたが、数日で急激に全身状態の悪化を認めた。

Fournier 症候群の診断については明文化されたものはないが、上述の通りその本態は壊死性筋膜炎とされており、Fisher ら¹³⁾はその診断基準を臨床所見・組織学的所見から①広範な浅筋膜と周囲組織の壊死、②精神症状を伴う、中等度ないし高度の全身性中毒症状、③筋層が侵されない、④創および血液中に clostridia が証明されない、⑤大血管の閉塞がない、⑥病理組織検査で、高度の白血球浸潤、筋膜と周囲組織の壊死、微小血管の血栓を伴う症例、としている。本症例では病理組織学的検索を行っていないため⑥に関する所見の有無は不明であるが、その他の所見については合致しており、壊死性筋膜炎、Fournier 症候群として矛盾しない病態と考えられた。さらに壊死性筋膜炎の補助的診断として利用される LRINECscore¹⁴⁾においても本症例は 3 月の外来受診時は 0 であったが、4 月の増悪時には 7 (6 以上で壊死性筋膜炎疑い) と急激な上昇を示しており、外来受診時の膿皮症再燃の状態から急激に Fournier 症候群へと移行したものと考えられた。

Fournier 症候群の原因としては①肛門疾患②外傷③尿路感染などが報告されており⁴⁾、なかでも肛門疾

患は本邦報告例のうち 40% を占め最も多いとされている⁵⁾。過去にも痔瘻や痔核の術後に Fournier 症候群を発症した報告が散見される¹⁵⁻¹⁷⁾。しかし本症例では慢性臀部膿皮症の経過中に痔瘻の合併はみられたものの、手術により治癒しており、本エピソードにおいては痔瘻の再燃も画像上、身体所見上明らかではなかった。

本症例も過去の Fournier 症候群の報告に多くみられるように糖尿病を併存しており、10 年前の慢性臀部膿皮症の治癒後も糖尿病のコントロールは不良のまま経過していたと考えられる。糖尿病の存在下では微小血管閉塞が起こりやすく、組織壊死が生じやすい。さらに高血糖や循環不全によるケトアシドーシスは嫌気性菌増殖の好条件であるとされ¹⁸⁾、poly-surgery による臀部皮下組織の血流不全や、濃厚な喫煙歴による慢性的な末梢循環不全などの影響もあり急激に症状が増悪、Fournier 症候群への移行の原因となったと考えられた。

前述のように慢性臀部膿皮症は皮下を主座とした病態であり、本症例は痔瘻などを介さず筋膜炎が主体である Fournier 症候群へ移行した稀な 1 例であると考えられた。医学会中央雑誌で 1983 年 1 月から 2019 年 6 月までに「Fournier 症候群」「慢性臀部膿皮症」をキーワードに検索を行ったが報告は認められなかった。

慢性臀部膿皮症を背景に病巣が拡大したため、進展形式はいわゆる外攻型となったため、手術による十分なドレナージ、デブリードマンが行えたことが良好な経過につながった一因と考えられた。また慢性臀部膿皮症治療の際に造設した人工肛門を患者希望で閉鎖していなかったことも、罹患部の便汚染による感染の増悪を回避できた点、さらには術後早期

からの経口摂取開始が可能であった点などから幸運であったといえる。

Fournier 症候群の治療は早期診断のうえ、積極的な外科的ドレナージを行いつつ、適切な抗生剤治療ならびに基礎疾患の治療を含めた全身管理が基本となる。肛門疾患の治療歴のある症例では特に、本症例のように治癒後長期間経過後であっても肛門痛や肛門周囲の発赤、腫脹などの症状を認めた場合、本疾患も念頭に置いて診療に当たる必要があると考えられた。

利益相反：なし

文 献

- 1) 長尾貞紀, 我妻亜喜雄, 橋本憲樹ほか: 臀部慢性膿皮症. 西日本皮膚科 39: 701-711, 1977
- 2) Fournier AJ: Gangrene foudroyante de la verge. Semaine Med 3: 345-348, 1883
- 3) 馬場恵一, 村木 修, 入澤千晴ほか: 若年男性に発症したフルニエ壊疽. 臨床泌尿器科 50: 248-249, 1996
- 4) Jones RB, Hirschmann JV, Brown GS, et al: Fournier's syndrome; necrotizing subcutaneous infection of the male genitalia. J Urol 122: 279-282, 1979
- 5) 辻 順之, 高野正博, 黒水丈次ほか: 肛門膿瘍が原因と思われる Fournier's gangrene の 1 例. 日本臨床外科学会誌 58: 2721-2726, 1997
- 6) 阿部好弘, 福山訓生, 岡本亮爾ほか: 虫垂炎穿孔に合併した Fournier 症候群の 1 例. 日臨外医会誌 58: 2162-2166, 1997
- 7) 小野千尋, 井上 豪, 井上 哲ほか: 内攻型 Fournier 症候群の一例. 日臨外医会誌 57: 2041-2044, 1996
- 8) 岩垂純一, 隅越幸男, 小野力三郎ほか: 肛門周囲の Hidradenitis Suppurativa, いわゆる膿皮症について—とくに痔瘻との関連について—. 日本大腸肛門病会誌 40: 813-821, 1987
- 9) 徳田安章: 慢性膿皮症, 現代皮膚科学体系 (山村雄一, 久木田淳, 佐野榮春, 清寺 眞編), 6-A, 中山書店, 東京, 1983, p99-111
- 10) 井上勝平, 菊池一郎, 多田 茂ほか: 汗腺膿瘍 (成人例). 皮膚病診療 4: 532-536, 1982
- 11) 藤岡範子, 西川千香子, 須賀 康ほか: 臀部慢性膿皮症 (汎発型) の 2 例. Skin Surgery 1: 47-52, 1992
- 12) 加賀美潔: 臀部慢性膿皮症の 1 例—最近の文献例とともに—. 化学療法領域 5: 1293-1296, 1989
- 13) Fisher JR, Conway MJ, Takeshita RT, et al: Necrotizing Fasciitis from other soft tissue infections. JAMA 241: 803-806, 1979
- 14) Wong CH, Khin LW, Heng KS, et al: The LRINEC (Laboratory Risk Indicator for Necrotizing Fasciitis) score: a tool for distinguishing necrotizing fasciitis from other soft tissue infections. Crit Care Med 32: 1535-1541, 2004
- 15) 三枝純一, 三枝純郎, 吉田正一: 痔瘻根治術後の Fournier 症候群と思われる 1 例. 日本大腸肛門病会誌 42: 1254-1257, 1989
- 16) 安藤清宏, 君塚 圭, 大原守貴ほか: 直腸脱術後に発症した Fournier's gangrene の 1 例. 日臨外会誌 67: 662-665, 2006
- 17) 山本精一, 泉 良平, 福島 亘ほか: 痔核根治術後に発症した Fournier's gangrene の 1 例. 日臨外会誌 63: 2989-2992, 2002
- 18) 若杉純一, 金 正文, 簾田康一郎ほか: 痔瘻から発生したガス産生性壊疽性筋膜炎 (Fournier's Gangrene) の 1 例. 日本大腸肛門病会誌 45: 480-484, 1992

Fournier's Gangrene Progressed from Recurrent Chronic Perineal Pyoderma that Had Been Cured Completely 10 years Earlier

Yutaka Yagi, Takashi Kobayashi, Takaoki Watanabe and Kana Tanaka

Department of Surgery, Rinko Hospital

A 72-year-old male was referred to our hospital because of discharging pus from an anal fistula. He had undergone an operation for chronic perineal pyoderma and been cured completely 10 years earlier. On admission, CT and MRI findings showed a subcutaneous abscess with abnormal gas from the perineum to presacral space. Fournier's gangrene was diagnosed and debridement was performed. No evidence of recurrence or new lesion of the anal fistula was found after debridement. Chronic perineal pyoderma is mainly caused by chronic skin infection due to pore occlusion, and in many cases spreads in mainly one subcutaneous space. On the other hand Fournier's gangrene is commonly known as necrotizing fascitis which develops from an anorectal disease like an anal fistula, and spreads through the fascia. In this case, chronic perineal pyoderma in the subcutaneous space relapsed after a long time had probably progressed to Fournier's gangrene.

Key words: Fournier's gangrene, Chronic perineal pyoderma

(2019 年 10 月 4 日受付)

(2020 年 1 月 17 日受理)