症例

尿膜管放線菌症の1例

奈良県立奈良病院外科, 奈良県立医科大学第1外科*

向 川 智 英 渡 部 高 昌 本 郷 三 郎
中 野 博 重*

A Case of Actinomycosis in the Urachal Remnants

Tomohide MUKOUGAWA, Takaaki WATANABE, Saburou HONGO
and Hiroshige NAKANO*

Department of Surgery, Nara Prefectural Nara Hospital

**The 1st Department of Surgery, Nara Medical University*

68歳の男性が臍下部の有痛性腫瘍と頻尿を主訴に来院した。腹部CT, 超音波検査から腹壁sarcomaあるいは尿膜管腫瘍と診断し, 手術を施行した。腫瘍は臍と連続し, 腹膜面に浸潤していたが, 腹腔内臓器との癒着はなかった。手術により周囲腹壁を含めて腫瘍を完全に切除した。病理組織像にて放線菌塊を認め, 尿膜管原発の放線菌性肉芽腫症と診断した。泌尿器系の放線菌症の中でも尿膜管放線菌症は稀で, 自験例を含め14例が報告されているのみである。自験例では臍との連続性から臍経路の感染が示唆されたが確証は得られなかった。腫瘍は著明な線維化のため非常に硬く, また術前の画像診断でも悪性腫瘍との鑑別は困難であった。自験例では外科的切除のみで抗生物質の投与を行っていないが, 術後2年経過した現在, 再発の徴候は認められない。

索引用語: 放線菌症 (actinomycosis), 尿膜管損傷 (a urachal tumor)

緒 言

放線菌症はActinomyces israeliiによって惹起される慢性肉芽腫性疾患で, 顔面・頸部, 胸部, 腹部に好発し, 泌尿器系に発生する放線菌症は比較的稀である。泌尿器系の感染臓器として腎, 膀胱, 前立腺, 尿膜管があげられるが, 尿膜管放線菌症の報告は自験例で14例目である。一般に放線菌症では広範な病巣を形成したり, 悪性腫瘍との鑑別診断が困難なことがあるため, 手術で過大侵襲となりやすく, われわれ外科医にとって注意すべき疾患の1つであるので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 68歳, 男性。

主訴: 臍下部の有痛性腫瘍, 頻尿。

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 平成2年, 舌癌にて手術。

現病歴: 平成7年2月頃から臍周囲のチクチクした疼痛と頻尿を自覚し, 近くの泌尿器科を受診した。同院で臍下部に腫瘍を指摘され当科に紹介された。

入院時現症: 身長163cm, 体重71kg。血圧150/88mmHg, 脈拍72回/分, 整。臍下部に径10cm大の境界明瞭で平滑な硬い腫瘍を触知した。胸腹部理学所見上異常なし。

入院時検査成績: WBC8500 (Neutro 69.4%)

と軽度上昇していた以外に末梢血、血液生化学検査上異常は認められなかった。

腹部超音波検査：腹壁深層に径 $7 \times 3 \times 3$ cm大、境界明瞭で内部不均一な低エコー域を呈する腫瘤を認めた。(Fig. 1)。

腹部CT検査：膀胱下部正中の白線および腹直筋下に境界明瞭な腫瘤が存在し、造影にて不均一に濃染された。腫瘤直下に腸管および腸間膜を認めたが、浸潤の有無は明らかではなかった (Fig. 2)。

注腸検査：大腸の粘膜面に異常は認められず、壁外からの圧排所見も認められなかった。

以上の検査所見から腹壁原発のsarcomaあるいは尿管腫瘍と診断し、平成7年4月14日手術を施行した。

手術所見：腫瘤縁より約1cm外側の右腹直筋外縁にて開腹し腫瘤を含む腹壁を反転させた。腫瘤直下の腹膜は浸潤のため白色調を呈していたが、腹腔内臓器との癒着はなかった (Fig. 3)。その他腹腔内臓器に異常は認められなかった。腫瘤は臍と連続しており剥離不可能なため、臍および

Fig. 1 Ultrasonographic examination revealed a well-demarcated low echoic mass.

Fig. 2 Contrast enhancement computed tomography revealed a heterogeneous density mass below the rectus abdominis muscle.

Fig. 3 Operative findings: The peritoneum below the mass was whitish because of the invasion, but the mass didn't adhere to the intra-abdominal organs.

腫瘤縁から約1cm離れた周囲腹壁を含めて腫瘤を完全に切除した (Fig. 4a)。

切除標本：固定後の断面では腫瘤の境界は比較的明瞭であるが被膜は認められなかった。腫瘤は灰白色で臍と連続しており、また腹膜への浸潤が認められた (Fig. 4b)。

病理組織学的所見：腫瘤は好中球、形質細胞を主とする広範な炎症細胞浸潤を伴った線維性組織から成り、いわゆる肉芽腫性炎 (granulomatous inflammation) の所見を呈していた。腫瘤内には微小膿瘍 (microabscess) が散在し、その中心部には菌塊 (Druse: Sulfur granule) が認められたため放線菌症と診断された (Fig. 5a)。強拡大像では

Fig. 4a Resected surgical specimen: The mass of the abdominal wall was resected completely with the umbilicus.

Fig. 4b A cut surface of resected specimen: The whitish tumor measuring 7.0×4.5×4.0 cm connected with to the umbilicus and invaded the peritoneum.

菌塊の辺縁に放線菌という名前の由来となった棍棒状構造 (club formation) が認められた (Fig. 5b)。またGrocott染色では菌糸が黒色に染色された (Fig. 5c)。

考 察

放線菌は菌糸や孢子を有し形態的には真菌に類似するが、偏性嫌気性、グラム陽性、非抗酸性の細菌として放線菌目に属している¹⁾。放線菌症の起因菌の大半は *Actinomyces israelii* で人の口腔、消化管内、特に扁桃、菌垢、齲齒などに常在している。放線菌症はこの細菌によって惹起される慢性肉芽腫性疾患で、病巣内や排出物中に菌塊 (Sulfur granule, Druse) を形成することが大きな特徴である²⁾。発生部位について Cope³⁾ は顔面・頸部 56.8%、胸部 15.0%、腹部 23.3%、甘美ら⁴⁾ は各々 65.5%、8.9%、18.6% と報告しており、顔面・頸部が過半数を占めている。泌尿器系に発生した放

Fig. 5a Microscopic findings of the tumor: the tumor was composed of the extensive fibrous tissue with the infiltration of inflammatory cells and "Druse: Sulfur granule" was shown in some microabscesses. (Hematoxylin and eosin stain, × 40)

Fig. 5b "Club formation" was demonstrated at the edge of "Druse". (Hematoxylin and eosin stain, × 200)

Fig. 5c The branching mycelial filaments were stained blackly. (Grocott stain, × 100)

線菌症の報告は少なく腎⁵⁾⁶⁾、膀胱⁷⁾、前立腺⁸⁾、尿管^{9)~21)}が感染臓器としてあげられている。尿管放線菌症の報告はわれわれが検索し得た限りでは自験例を含め14例のみであった(**Table. 1**)。尿管に炎症性腫瘍を形成することは比較的多いが、そのほとんどが一般細菌の感染によるものである。また一般細菌の感染では膿瘍を形成することが多いが、放線菌による感染では繊維化の著明な炎症性腫瘍を形成することが特徴である。放線菌症の確定診断には病巣内や分泌物中に菌塊を証明するかまたは培養により菌を分離することが必要である。しかし実際には菌の検出率は24.7%と低く²⁾確定診断は困難である。尿管放線菌症の感染経路は臍または膀胱と推測されているが確定された例はない。自験例では臍との連続性から臍経路の感染が強く示唆されたが、分泌物はなく菌の培養同定はできなかった。また腹腔内に発生した放線菌症が腹壁に浸潤して腫瘍を形成していたとの報告²²⁾²³⁾もあるが、自験例では腫腔内臓器に異常は認められず、腹腔内からの感染の可能性は少ないと思われた。画像診断では超音波、CT、血管造影検査などいずれにおいても放線菌症に特異的な所見は認められない。よって肉芽形成が完成し炎症所見に乏しい腫瘍の場合、悪性腫瘍との鑑別は困難である。今回検索した自験例を含む尿管

管放線菌症14例でも術前に放線菌症を診断されたものではなく、腹壁sarcomaあるいは尿管管腫瘍と診断されていた。治療は以前ではX線療法、ヨードカリ療法、ワクチン療法など種々行われていた。現在では本疾患の病巣部は結合組織が多く比較的血管に乏しいため薬剤の浸透性が不十分である、また嫌気性である放線菌の発育に適した壊死組織を取り除く必要があるという理由から外科的切除がより重要とされている²⁴⁾。自験例では腫瘍が腹壁に局限しており臍を含む腹壁の切除にとどまったが、病巣が広範に進展しており大網、膀胱、腸管、子宮など多臓器合併切除を余儀なくされることも多い(**Table. 1**)。抗生物質の投与については、Herveyら²⁴⁾、Putmanら²⁵⁾は病巣切除後のPenicillinの長期大量投与を推奨しているが、最近では菅ら²²⁾、石塚ら²³⁾はPenicillinの長期大量投与は必要ないと述べている。自験例では腫瘍が腹壁に孤立性に存在し、病巣を完全に切除し得たと考え確定診断後も抗生物質の投与を行わなかった。現在術後2年経過したが、再発の徴候は認められない。

結 語

われわれは比較的稀な尿管放線菌症の1例を経験したので、その診断と治療法について若干の文献的考察を加え報告した。

Table. 1 14 Cases of Actinomycosis in the Urachal Remnants.

症例	報告者	報告年	年齢	性	主症状	術前診断	術式	抗生剤の使用
1	山崎	1960	51	F	記載なし	尿管管腫瘍	記載なし	記載なし
2	Minsker	1974	24	M	記載なし	fibrosarcoma	腫瘍切除	無
3	西田	1975	66	M	頻尿、排尿痛、下腹部痛	尿管管腫瘍または炎症性腫瘍	腫瘍切除、膀胱部分切除	有
4	浅野	1977	69	M	排尿痛、下腹部痛	膀胱腫瘍および尿管管腫瘍	膀胱・腹膜・腹直筋部分切除、腫瘍切除、左尿管膀胱吻合	記載なし
5	Grierson	1977	68	F	下腹部痛、便秘、体重減少	記載なし	腫瘍切除	有
6	Ellis	1978	16	M	排尿困難、下腹部膨満感	urachal abscess	drainage	有
7	岡村	1983	52	F	下腹部腫瘍、疼痛	尿管管腫瘍	腫瘍・膀胱切除、両側尿管皮膚ろう	有
8	Gotoh	1988	55	M	排尿痛、下腹部腫瘍	尿管管腫瘍	腫瘍切除、腹壁・膀胱部分切除	有
9	杉元	1990	40	F	頻尿、排尿痛	尿管管腫瘍	膀胱・子宮摘出術、回腸導管造設術	有
10	加島	1991	56	F	下腹部痛	尿管管腫瘍	尿管管切除、膀胱・大網合併切除	有
11	Wijk	1991	25	F	排尿困難、下腹部痛	an inflammatory or a neoplastic lesion	腫瘍切除、膀胱部分切除、大網、回腸部分切除	有
12	二村	1992	52	F	発熱、下腹部有痛性腫瘍	化膿性尿管管膿瘍または尿管管腫瘍	腫瘍摘出、大網・S状結腸・膀胱頂部合併切除	有
13	友部	1993	62	F	下腹部腫瘍	尿管管腫瘍	臍・尿管・膀胱頂部摘出、腹直筋・大網・膀胱部分切除	記載なし
14	自験例	1997	68	M	頻尿、下腹部有痛性腫瘍	sarcomaまたは尿管管腫瘍	腫瘍・臍・腹直筋部分切除	無

参考文献

- 1) 牛場大蔵, 齊藤和久: 放線菌類. 新細菌学入門. 南山堂, 東京, 1982, p245-246
- 2) 常葉信雄: ActinomycosisとNocardiosis, 最新医16: 522-531, 1961
- 3) Cope VZ: Actinomycosis. First edition. Oxford University Press, London, 1938, p17
- 4) 美甘義夫, 福島考古: 日本における内科的真菌症について. 日化療会誌6: 127-140, 1958
- 5) Crosse JEW, Soderdahl DW, Schamber DT: Renal actinomycosis. Urology 7: 309-311, 1976
- 6) Anhalt M, Scott R Jr: Primary unilateral renal actinomycosis: case report. J Urol 103: 126-129, 1970
- 7) Deshmukh AS, Kropp KA: Spontaneous vesicocutaneous fistula caused by actinomycosis. J Urol 112: 192-194, 1974
- 8) Souza E, Katz DA, Dworzack DL: Actinomycosis of the prostate. J Urol 133: 290-291, 1984
- 9) 山崎 巖, 中川清秀: 放射線菌感染症を伴った尿管遺残の1例. 日泌会誌51: 524, 1960
- 10) Minsker OB: Actinomycosis as a Complication of Anatomical Anomalies (of Branchiogenic Fistula, Urachus, Coccygeal Cyst). Mycosen 17: 289-295, 1972
- 11) 西田 享, 山田智二, 中村恭二: 放線菌感染による尿管の慢性炎症性肉芽腫の1例. 臨泌29: 551-555, 1975
- 12) 浅野聰平, 藤井 浩, 井口 吉: 膀胱移行上皮癌に合併した膀胱壁放線菌症. 日泌会誌68: 983-986, 1977
- 13) Grierson JM, Zelas P: Actinomycosis involving urachal remnants. Med J Aust 1: 849-852, 1977
- 14) Ellis LR, Kenny GM, Nellans RE: Urogenital aspects of actinomycosis. J Urol 122: 132-133, 1979
- 15) 岡村和弘, 高野 昇: 放線菌感染による慢性肉芽腫の1例. 京都第二赤十字病医誌4: 170-175, 1983
- 16) Gotoh S, Nagahama K, Higashi Y: Actinomycosis of urachal remnants. J Urol 140: 1534-1535, 1988
- 17) 杉元幹史, 野村伊作, 武田繁男: 尿管損傷を思わせた腹部放線菌症の1例. 西日泌52: 1428-1431, 1990
- 18) 加島健司, 駄阿 勉, 横山繁雄: 尿管放線菌症の1例. 病理と臨9: 1097-1100, 1991
- 19) Van Wijk FJ, Lodder JV: Actinomycosis of urachal remnants. Eur Urol 19: 339-340, 1991
- 20) 二村 学, 横尾直樹, 白子隆志: 尿管遺残に発生した放線菌症の1例. 日臨外医会誌54: 2390-2394, 1993
- 21) 友部光朗, 佐々木明, 笠谷俊也: 放線菌による尿管膿瘍の1例. 臨泌47: 241-244, 1993
- 22) 菅 淳一, 上田祐滋, 亀井隆史他: 誤嚥された魚骨片により惹起された腹壁放線菌症の1例. 臨外39: 551-553, 1984
- 23) 石塚文雄, 高橋規一, 舟田 隆: Sarcomaと考えられた腹部放線菌症の2例. 日臨外医会誌46: 1506-1512, 1985
- 24) Harvey JC, Cantrell JR, Fisher AM: Actinomycosis: Its recognition and treatment. Ann Int Med 46: 868-885, 1957
- 25) Putman HC, Dockerty MB, Waugh JM: Abdominal actinomycosis. An analysis of 122 cases. Surgery 28: 781-800, 1950