症例報告

systemic lupus erythematosus の経過中に S 状結腸—空腸・膀胱・皮膚瘻を形成し治療に難渋した 1 例

中川 顕志 石川 博文 大山 孝雄 渡辺 明彦

奈良県立奈良病院外科

症例は 65 歳の女性で、2001 年に全身性エリテマトーデスと診断され、ステロイド内服治療により症状は安定していた。2006 年 10 月に腹痛出現し、ループス腸炎が疑われたため、入院の上絶食・抗生剤投与・ステロイド増量が行われた。症状は一旦改善したが、経口摂取を開始しても再燃し、大腸内視鏡検査・注腸造影検査で S 状結腸に潰瘍性病変と膀胱 S 状結腸瘻を認めた。2007 年 2 月には腹壁気腫と皮膚瘻も出現したため当院転院となった。耐術能のコントロール目的でステロイドを漸減し、同年 7 月にハルトマン手術を施行した。病理組織学的検査所見で粘膜下層の血管炎が原因であると示唆された。術後は全身状態を観察しながらステロイド投与量をコントロールしており、再発を認めていない。全身性エリテマトーデスに伴う消化管穿孔はまれであるが予後不良であり、慎重なステロイド療法や適切な手術時期の判断などの治療戦略が重要であると考えた。

はじめに

全身性エリテマトーデス (systemic lupus erythematosus; 以下、SLE と略記) は自己免疫異常を基盤として、全身の結合組織および各種臓器に慢性炎症を来す疾患であり、時に多彩な消化管病変の合併が見られることが知られている¹⁾。今回、我々は SLE の経過中に膀胱・皮膚・多発腸瘻が形成され、診断治療に難渋した 1 例を経験したため、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：65 歳，女性

主訴：腹痛

既往歴：特になし。

現病歴：2001 年に SLE と診断され、プレドニゾロン 7.5mg 内服継続で寛解を維持していた。2006 年 6 月に便秘のスクリーニングで大腸内視鏡検査を施行され、S 状結腸に非連続性の炎症性変化が認められたが、病理組織学的検査所見は非特異的炎症であったため経過観察されていた。2006 年 10 月腹痛と炎症反応の上昇が出現しループス腸炎が疑われたため、近医に入院となった。

入院時現症：意識清明、体温 36.4℃ で貧血、黄疸を認めず。腹部は平坦軟で下腹部中心に圧痛を認めたが腹膜刺激症状は認めなかった。

入院時検査所見：白血球 11,500/μl, CRP 14.77mg/dl と炎症反応の上昇を認めたが、その他の血液生化学検査、尿検査に異常を認めなかった。胸腹部 X 線検査で特記すべき所見を認めなかった。入院時の CT で回盲部に軽度の浮腫状変化を認めたが、その他に特記すべき所見は認められなかった。

入院後経過：入院後は絶食・抗生剤投与とプレドニゾロン 20mg/日の点滴静注で加療され、症状は改

Table 1 Clinical chart after admission to our hospital

Fig. 1 Gastrografen enema showed narrowing of the sigmoid colon and cavity formation connected to the bladder, jejunum, and abdominal wall.

善した。しかし、経口摂取を再開すると、再び腹痛が出現し、11月上旬からは糞尿・肛門排尿が出現するようになった。大腸内視鏡検査を施行したところ、S 状結腸に多発性瘻孔と潰瘍性病変を認めた。また、膀胱鏡では膀胱頂部左側壁に拇指頭大の瘻孔を認めた。血中サイトメガロウイルス抗原は陰性で、便培養検査はカンジダと常在菌のみを認めた。絶食・抗生剤投与に加え、プレドニゾン点滴投与量を 60 mg/日に増量されたが、症状の改善はなく、2007 年 2 月には急激な腹痛の増悪とともに、左下腹部に腹壁気腫と皮膚瘻が出現した。精査・加療のため 2007 年 3 月末日、当科に転院となった。

Fig. 2 Abdominal CT demonstrated a cavity with low density tumor surrounded by the rectosigmoid colon, small intestine and bladder.

Fig. 3 Schematic illustration of operation showed an abscess cavity enclosed by sigmoid colon, jejunum, and bladder.

転院後の経過を示す (Table 1). 転院直後に行った注腸検査では、直腸から S 状結腸にかけての狭窄を認めた。続いて左側骨盤腔に球形の陰影欠損を有する cavity 形成と、そこから膀胱・皮膚への瘻孔を認めた (Fig. 1)。cavity 内の陰影欠損部は造影 CT で約 2cm の腫瘍像として描出された (Fig. 2)。転院後は腹部症状以外の SLE の症状が安定していたことから、手術加療も念頭に入れ、耐術能のコントロール目的で、プレドニゾロン点滴静注を 30mg/日から 2 週間ごとに漸減した。ステロイドの減量は、頭痛、発熱、出血や腹痛の増強が認められないことを目安とした。腹痛はオキシコドン塩酸塩でコントロールした。なお、経過中、炎症反応や補体価は正常範囲内で推移していた。転院後 2 か月が経過し、プレドニゾロン点滴静注が 15mg/日になった時点での膀胱造影では、膀胱-S 状結腸瘻は鮮明に造影されていたが、膿瘍腔は縮小傾向を示した。同時期にガストログラフィン経口による小腸造影を行ったところ、空腸が造影された直後に S 状結腸・膀胱も造影されていた。以上より、瘻孔は S 状結腸—膀胱—空腸—皮膚に渡るものと判断した。さらに、ステロイドの減量に伴い皮膚瘻からの排液は減少するようになり、尿は正常化を認めた。再度膀胱造影・注腸を行うと、膀胱 S 状結腸瘻は縮小傾向にあり、直腸 S 状結腸

Fig. 4 a: Resected specimen of rectosigmoid colon showed tumor formation with a perforation site in the center. b: The perforation site of sigmoid colon formed external translocation and stricture of oral side orifice.

はさらに狭窄した。原因として、ステロイド減量による治癒機転が働いたと考えられた。膀胱鏡でも膀胱瘻はほぼ閉鎖し、大腸内視鏡の直腸 S 状結腸の通過は不可能であった。以上により腸閉塞の発症が危ぐされたため、同年 7 月に手術を施行した。

手術所見：開腹すると、左下腹部に小腸間膜が面状に癒着し、剥離すると S 状結腸・空腸・膀胱に囲まれた膿瘍腔に到達した。膿瘍腔の中心には造影検査で陰影欠損として描出された S 状結腸の腫瘍を認めた。さらに S 状結腸の腫瘍から膿瘍腔を介して膿瘍壁を形成する空腸に 2 か所、膀胱に 1 か所の瘻孔形成を認めた (Fig. 3)。皮膚瘻は自然に閉鎖されていた。腫瘍とともに直腸 S 状結腸を切除し、下行結腸人工肛門を造設した。空腸・膀胱の瘻孔部は楔状に部分切除して縫合閉鎖した。

切除標本所見：S 状結腸から cavity へと交通していた腫瘍を観察すると、S 状結腸穿孔部の粘膜面が翻転したものであった (Fig. 4a)。穿孔部の外翻により腸管内腔が収縮し狭窄を来していた (Fig. 4b)。瘻孔は何らかの原因で S 状結腸が穿孔後に外翻し、cavity を形成し、それが小腸・膀胱・皮膚へ穿通して形成されたと考えられた (Fig. 5)。

病理組織学的検査所見：S 状結腸の粘膜面に潰瘍形成を認めたが、悪性所見は認められなかった (Fig. 6a)。S 状結腸穿孔部の粘膜下層の血管壁に動脈硬化やフィブリノイド壊死は認めなかったが、炎症性細胞の強い浸潤を伴う血管内膜の著明な肥厚と血栓形成により、血管内腔が狭窄を来し虚血状態を呈していると診断された (Fig. 6b)。以上より穿孔・瘻孔形成に際し、SLE による S 状結腸粘膜下組織の血管炎が関連していることが示唆された。

術後経過：ステロイドを発症前のプレドニゾン 7.5mg 内服まで漸減したが再発なく、術後 3 か月で歩行退院した。術後約 4 年の現在も再発を認めていない。

Fig. 5 Presumable schematic explanation of this specimen.
a: An oblique perforation developed. **b:** The mucosa on the anal side developed external translocation by the serosal inflammatory contraction and orifice of the oral side contracted. **c:** Tumor formation with stricture.

Fig. 6 **a:** The perforation site is covered with mucosal tissue (arrows), and has no malignant findings. **b:** Histological findings revealed thickening of the vascular wall (arrows), and infiltration of inflammatory cells in the submucosal layer.

考 察

全身性エリテマトーデスは全身の結合組織に炎症を来し多彩な臨床症状を呈する自己免疫性疾患であ

Table 2 Case reports of intestinal perforation with SLE in Japan (1983–2010)

No.	Author	Year	Age	Sex	Chief complaint	Suffering term	PSL/day	Site of perforation	Outcome
1	Hiyama ³⁾	1984	15	F	bloody feces	4 y	unknown	ileum	dead
2	Hiyama ³⁾	1984	8	F	abdominal pain	7 m	pulse	jejunum	alive
3	Kitamura ⁴⁾	1989	28	F	bloody feces	6 m	unknown	ileum	alive
4	Yoshihara ⁵⁾	1989	51	F	vomiting	10 y	unknown	T	dead
5	Igarashi ⁶⁾	1991	31	F	abdominal pain	10 y	semi pulse	R	dead
6	Hagiwara ⁷⁾	1991	34	F	abdominal pain	1 y	30 mg	ileum	alive
7	Hagiwara ⁷⁾	1991	27	F	abdominal pain	9 y	pulse	S	dead
8	Ookubo ⁸⁾	1994	51	F	abdominal pain	15 y	semi pulse	S	unknown
9	Nagahama ⁹⁾	1996	43	F	vomiting・fever	8 y	unknown	ileum	dead
10	Ozeki ¹⁰⁾	1998	54	F	fever	25 y	17.5 mg	R	dead
11	Nagayama ¹¹⁾	1998	45	M	fever・abdominal pain	4 y	60 mg	jejunum	unknown
12	Toyota ¹²⁾	1998	37	M	abdominal pain・bloody feces	13 y	unknown	R	dead
13	Funakoshi ¹³⁾	1999	43	F	general fatigue	17 y	10 mg	ileum	dead
14	Nishijima ¹⁴⁾	1999	53	F	abdominal pain	12 y	10 mg	ileum	alive
15	Teramoto ¹⁵⁾	1999	41	M	diarrhea・abdominal pain	25 y	10 mg	R	alive
16	Kodama ¹⁶⁾	2001	39	F	diarrhea・abdominal pain	14 y10 m	10 mg	R	alive
17	Sekiguchi ¹⁷⁾	2001	27	F	fever	2 m	pulse	ileum	dead
18	Inoue ¹⁸⁾	2002	24	F	abdominal pain	10 y2 m	pulse	T	dead
19	Kasama ¹⁹⁾	2003	30	F	fever・abdominal pain・vomiting	unknown	20 mg	jejunum	alive
20	Suzuki ²⁰⁾	2004	45	M	fever・abdominal pain・vomiting	16 y5 m	30 mg	R	alive
21	Kanai ²¹⁾	2005	36	F	abdominal pain	18 y	90 mg	T	alive
22	Hata ²²⁾	2006	55	F	abdominal pain	22 y	20 mg	S	alive
23	Wada ²³⁾	2006	15	F	abdominal pain	2 y8 m	20 mg	duodenum	alive
24	Ohara ²⁴⁾	2007	52	F	abdominal pain・bloody feces	unknown	50 mg	R	alive
25	Hataji ²⁵⁾	2007	56	F	abdominal pain・vomiting	8 y	9 mg	D	alive
26	Iwaisako ²⁶⁾	2008	74	M	fever・abdominal pain	3 y	10 mg	D	alive
27	Yoneyama ²⁷⁾	2008	56	F	abdominal pain	32 y	10 mg	ileum	dead
28	Sudou ²⁸⁾	2008	48	F	abdominal pain	13 y	50 mg	jejunum	alive
29	Takashima ²⁹⁾	2009	57	M	diarrhea	4 y	15 mg	S	dead
30	Our case		65	F	abdominal pain	5 y	60 mg	S	alive

る。原疾患に伴う消化管病変はループス腸炎と呼ばれる。悪心、嘔吐、食欲不振などの消化器症状は比較的高率に認められるが、消化管出血、消化管穿孔などの重篤な合併症が出現することは非常にまれといわれている。しかし、Zizic ら²⁾は SLE15 例の死亡原因を検討したところ、4 例が下部消化管穿孔によるものであったと報告しており、一旦これらの合併症が発症すると、頻度は少ないものの極めて予後が不良であると考えられる。

本邦報告例では 1983 年から 2010 年までの医学中央雑誌で「SLE」,「消化管穿孔」をキーワードに検索したかぎり、SLE に消化管穿孔を来した論文報告例は自験例を含め 30 例 (Table 2)^{3)~29)}であった。平均

年齢は 41.3 歳 (8~74 歳) で、男性 6 例・女性 24 例であった。SLE 初発時から消化管穿孔発症までの病期間や病勢およびステロイド投与量に一定の傾向は認めないが、多くの症例は発熱・腹痛・下血などの症状で発症し、穿孔部位は S 状結腸から直腸に多く認められた。30 例中 12 例は敗血症、多臓器不全により死亡していた。これらはステロイド内服により症状がマスクされたため診断が遅れたことが原因と考えられた。Berg ら³⁰⁾はこれを steroid masking と呼び、診断の遅れにつながることを指摘している。なお、瘻孔形成を認めた症例は 2 例¹⁰⁾³¹⁾報告されていたが、本症例のように穿孔部に粘膜腫瘍を形成した報告例は他に認めなかった。

SLE の消化管病変は腸管および腸間膜の血管炎に起因するものと考えられている。その病理組織学的検査所見について Pollak ら³²⁾は、腸管粘膜下組織の微小血管に浮腫性の変化と、炎症細胞の浸潤を伴うフィブリノイド壊死が認められることをあげており、Kistin ら³³⁾は特に小動脈の著明な内膜肥厚を強調している。その臨床症状は感染や血栓による病態と鑑別困難であるが、このような粘膜下層から漿膜下組織に起こる炎症を反映し、感染性腸炎や通常の虚血性腸炎と異なり消化管粘膜面の変化に乏しく、CT では腸管壁の粘膜下層以深の浮腫性変化として描出される。

一般にステロイド治療中の SLE 患者における穿孔の原因として、① SLE の血管病変がもたらす粘膜下組織の虚血による壊死や、②ステロイドによる腸管壁の脆弱化、潰瘍形成や創傷治癒遅延などが考えられる。本邦報告例では全例ステロイド投与が行われていたが有効性が一定せず、ステロイドパルス療法不応例⁸⁾¹⁷⁾¹⁸⁾や他臓器に SLE の活動性がみられない時期に消化管穿孔が出現している症例¹⁹⁾²⁹⁾も少なくない。そのため、穿孔の誘因として動脈硬化や便通障害などの機械的な腸管内圧の上昇が関与している可能性など⁸⁾、一定の見解は得られていない。本症例においてもステロイド大量投与後、一旦症状が消退後に穿孔の出現をみており、ステロイド使用を基盤とした変化も否定はできない。しかし、摘出された腸管の病理組織学的検査所見において SLE の血管炎に特徴的とされるフィブリノイド壊死を認めないものの、粘膜下層の血管壁への強い炎症細胞浸潤と血管内膜の著明な肥厚がみられたことは、穿孔・瘻孔形成の原因として SLE に伴う血管炎が存在していたことを強く示唆している。臨床経過および病理組織学的検査所見から考察すると、本症例は消化管穿孔を来したが周囲臓器および腹壁に被覆され、cavity を形成後に穿通し瘻孔形成に至ったと考えられる。さらに穿孔部は粘膜下層および漿膜が炎症により収縮したことで粘膜面が外側に引きつれて翻転して cavity 内に腫瘤を形成したと考えられ、非常に特殊なケースであったと考えられる。

SLE の消化管病変の治療に際して、ループス腸炎における腹痛・下痢・嘔吐などの急性腹症様症状は、絶食による消化管の安静と、血管炎の治療に準じてステロイドや免疫抑制剤の投与により速やかに改善を期待できる。しかし一旦消化管穿孔を来すと予後不良であることから、外科的治療を含めた迅速な治療方針の決定が必要となる。Juvaisas ら³⁴⁾は SLE の経過中、急性腹症が血管炎によるものと診断されればステロイドの大量投与を行い、24 時間以内に改善が認められなければ開腹手術を検討することを推奨している。そのため従来は初期治療としてステロイド大量療法や緊急手術が行われてきたが、原疾患もしくはステロイド大量投与などの前治療によりすでに全身状態が不安定であることや、術後コントロールが困難なため救命できなかった報告例¹³⁾¹⁸⁾²⁷⁾²⁹⁾も少なくない。自験例では消化管穿孔を来していたものの、同時に発症した皮膚瘻により自然にドレナージされていたため、リスクの高い緊急手術を回避しひとまず SLE の制御を含めた全身管理を行い、耐術能を見極めたうえで手術を行ったことが奏効したのと考えられる。以上をふまえると、いかに早くループス腸炎と診断し初期治療を開始するかということに加えて、ステロイド療法の創傷治癒障害に伴う縫合不全や創傷開、感染症などの周術期合併症を考慮したうえで、関係各科と連携し慎重なステロイド療法と手術時期を含めた治療選択を行うことが患者の予後を左右する重要な因子であると考えられる。

文献

- 1) 渡辺憲治, 杉森聖司, 鎌田紀子, 十河光栄, 山上博一, 富永和作, ほか. 全身性エリテマトーデス (SLE) と消化管疾患. 臨牀消化器内科. 2009;24(7):899-905.
- 2) Zizic TM, Shulman LE, Stevens MB. Colonic perforation in systemic lupus erythematosus. Medicine. 1975;54:411-26.
- 3) 檜山英三, 市川 徹, 横山 隆. 小児 SLE に合併した小腸穿孔の 2 症例. 日本小児外科学会雑誌. 1984;20(6):1239-46.
- 4) 北村 薫, 中橋 恒, 朔 元則, 前川宗一郎. Systemic lupus erythematosus に合併した小腸多発穿孔の 1 治験例. 日本消化器外科学会雑誌. 1989;22(1):135-8.
- 5) 吉原良祐, 小橋帝生, 黒木康雄, 森本一平, 田中泰史, 塩沢俊一, ほか. 肝硬変, 門脈血栓を含む全身性多発性血栓症を伴った SLE の一症例. 臨牀リウマチ. 1990;2(3):215-21.
- 6) 五十嵐正広, 勝又伴栄, 小林清典, 芦原 毅, 西元寺克禮, 高橋俊毅, ほか. SLE 治療中に直腸潰瘍穿孔を来した 1 例. 胃と腸. 1991;26(11):1285-90.
- 7) 萩原恵里, 青木昭子, 川井孝子, 吉田洋子, 成田雅弘, 松永敬一郎, ほか. 腸穿孔を合併した全身性エリテマトーデスの 2 例. 日本臨床免疫学会雑誌. 1991;14(3):321-6.
- 8) 大久保貴生, 久保田芳郎, 大矢正俊, 深柄和彦, 袖山元秀, 鈴木宏幸, 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. 1994;48(9):1409-12.
- 9) Nagahama M, Miyazato H, Kusano T, Muto Y, Shimada K, Gima T, et al. A case of overlap syndrome (rheumatoid arthritis and systemic lupus erythematosus) with ileal perforation in amyloidosis. Ryukyu Med J. 1996;16(3):135-8.
- 10) 小関 至, 阿部 敬, 酒井 基, 諏訪高磨, 増川丈児, 米沢和彦, ほか. 腸管穿孔をきたした SLE のまれな 1 例. リウマチ. 1998;38(3):523-8.
- 11) 永山雅晴, 小谷野憲一, 阪口周吉, 千田金吾. 上腸間膜動脈血栓症を発症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. 呼吸と循環. 1998;46(8):821-5.
- 12) 豊田尚之, 木村文子, 吉田勢津, 松野 清, 山根修治, 中村 進, ほか. 骨盤内出血に対する塞栓術の 1 例—全身性エリテマトーデスによる直腸潰瘍穿孔術後例—. 画像診断. 1998;18(10):1082-5.
- 13) 船越 元, 柏木陽一郎, 横田英介, 松本 勲, 堺 勇二, 山本一郎. 小腸潰瘍穿孔をきたした全身性エリテマトーデスの 1 例. 内科. 1999;83(5):977-80.
- 14) 西島弘二, 西村元一, 伏田幸夫, 藤村 隆, 清水康一, 三輪晃一, 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. 日本臨床外科学会雑誌. 1999;60(7):1947-51.
- 15) Teramoto J, Takahashi Y, Katsuki S, Sato T, Sakamaki S, Kobayashi D, et al. Systemic lupus erythematosus with a giant rectal ulcer and perforation. Intern Med. 1999;38(8):643-9.
- 16) 児玉国洋, 武田 昭, 滝沢秀典, 中野康宏, 朝倉琢磨, 太田真弓, ほか. 血管炎による直腸穿孔を発症した肺高血圧症合併 SLE の 1 例. 関東リウマチ. 2001;35:50-8.
- 17) 関口直哉, 井上優子, 亀田秀人, 天野宏一, 安倍 達, 竹内 勤. RA の経過中に蛋白尿, 四肢壊疽, 小腸穿孔, 多発性脳梗塞をきたした SLE の合併と診断された 1 例. 関東リウマチ. 2001;35:180-9.
- 18) 井上靖浩, 湊 栄治, 山本隆行, 三木晋雄, 楠 正人. 横行結腸穿孔をきたした SLE の 1 例. 日本消化器外科学会雑誌. 2002;35(3):342-6.
- 19) 笠間晃彦, 中村啓二郎, 黄川恭子, 金井正仁, 松村竜太郎. 出産 2 ヶ月後に心不全と穿孔性腹膜炎を併発した SLE の 1 例. ICU と CCU. 2003;27(11):1003-9.
- 20) 鈴木友宜, 荒井邦佳, 岩崎芳毅, 片柳 創, 高橋慶一, 山口達郎, ほか. 直腸穿孔を合併した SLE の 1 例. 日本消化器外科学会雑誌. 2004;37(8):1503-8.
- 21) 金井尚之, 村岡麻樹, 新井隆男, 内田康太郎, 藤川 正, 行岡哲男, ほか. 消化管穿孔術後の管理に難渋した SLE の 1 例. 日本腹部救急医学会雑誌. 2005;25(6):780-1.
- 22) 秦 政輝, 前多 力, 山本哲朗, 北島政幸, 笠巻伸二, 渡部智雄, ほか. SLE 患者に発症したステロイド内服が原因と考えられる腸管穿孔の 1 例. 日本消化器外科学会雑誌. 2006;39(8):1408-13.
- 23) 和田靖之, 高橋久美子, 南波広行, 大島早希子, 久保政勝, 衛藤義勝. 十二指腸穿孔をきたした Lupus cystitis 合併の小児期発症 SLE の 1 女児例. 臨牀リウマチ. 2006;18(3):232-8.
- 24) 小原美琴子, 高橋裕樹, 鈴木知佐子, 山本元久, 苗代康可, 山本博幸, ほか. 深在性エリテマトーデスにて加療中, 重篤な消化管病変を伴う全身性エリテマトーデスへの進展を認めた一例. 日本臨床免疫学会雑誌. 2007;30(1):48-54.
- 25) 畑地慶三, 櫻井 丈, 片山真史, 榎本武治, 重田 博, 中野 浩, ほか. SLE に併発した結腸穿孔の 1 例. 日本腹部救急医学会雑誌. 2007;27(6):895-8.
- 26) 祝迫恵子, 岡本大輔, 浮草 実. 大腸穿孔をきたした SLE の 1 例. 日本腹部救急医学会雑誌. 2008;28(3):507-10.
- 27) 米山公康. 壊死性血管炎により連続的に多発性腸管穿孔をきたした全身性エリテマトーデスの 1 例. 日本臨床外科学会雑誌. 2008;69(8):1960-3.
- 28) 須藤麻梨子, 安田正人, 関 姿恵, 永井弥生, 石川 治. 小腸穿孔を繰り返し, 下大静脈血栓症を併発した SLE—ループス膀胱炎, 腸炎の関与が考えられた 1 例—. 日本皮膚科学会雑誌. 2010;120(4):881-6.
- 29) 高嶋一博, 細野俊介, 金 修一, 内山 清, 清水義博. SLE に合併した大腸穿孔の 1 例: 本邦の報告例の検討とともに. 手術. 2009;63(8):1205-9.
- 30) Berg P, Postel AH, Lee SL. Perforation of the ileum in steroid-treated systemic lupus erythematosus a case report. Am J Dig Dis. 1960;5:274-82.
- 31) 大下恭弘, 原田 亘, 刈屋憲次. 麻痺性イレウスを呈し瘻孔形成を認めた全身性エリテマトーデスの高齢男性の 1 例. 日本消化器病学会雑誌. 1999;96(4):413-7.
- 32) Pollark VE, Grove WJ, Kark RM. Systemic lupus erythematosus stimulating acute surgical conditions of the abdomen. N Eng J Med. 1958;259:258-66.
- 33) Kistin MG, Kaplan MM, Harrington JT. Diffuse ischemic colitis associated with systemic lupus erythematosus—response to subtotal colectomy. Gastroenterology. 1978;75:1147-51.
- 34) Jovaisas A, Kraag G. Acute gastrointestinal manifestation of systemic lupus erythematosus. Can J Surg. 1987;30:185-8.

CASE REPORT

Systemic Lupus Erythematosus with a Vesico-sigmoid Colon-jejunum-cutaneous Fistula

Kenji Nakagawa, Hirofumi Ishikawa, Takao Oyama and Akihiko Watanabe

Department of Surgery, Nara Prefectural Nara Hospital

A 65-year-old woman, with a history of systemic lupus erythematosus (SLE) and treatment with prednisolone for 5 years, was admitted to our hospital for acute abdomen. As lupus enteritis was suspected, high doses of corticosteroid therapy were given. This treatment resulted in transient improvement, but fecaluria and intestinal fistula developed. Endoscopic and radiological examination showed vesico-sigmoid colonojejunalcutaneous fistula. As physical examination and laboratory findings did not reveal increased activity of SLE, fistulectomy, rectosigmoidectomy and colostomy (Hartmann's operation) were performed after steroid tapering. Histopathological findings of the resected specimen showed inflammation of intramural vessels and were compatible with lupus enteritis. After operation, she had an uneventful clinical course. Since intestinal perforation in SLE is rare and has a grim prognosis, careful management of steroid and timing of operation are important.

Key Words: systemic lupus erythematosus, intestinal perforation, fistula

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2012;45(6):688-696]

Reprint requests: Kenji Nakagawa Department of Surgery, Heisei Memorial Hospital
827 Shijo-cho, Kashihara, 634-0813 JAPAN

Accepted: January 25, 2012