多臓器切除を要した腹部放線菌症の1例

名古屋市立大学第2外科

川村 弘之 片岡 誠 桑原 義之 呉山 泰進
岩田 宏 篠田 憲幸 加島 健利 佐藤 篤司
服部 浩次 中野浩一郎 正岡 昭

患者は53歳の女性で、右下腹部有痛性腫瘤にて入院。回腸、S状結腸、右卵巣に浸潤した回盲部悪性腫瘍と診断し、腫瘤を含め多臓器合併切除を施行したが、術後の病理診断にて放線菌症と判明した。本症の臨床上的問題点は、術前診断が困難な点にある。今回1957年から1991年までの腹部放線菌症121例の手術報告例を集計し、術前診断に有用な臨床所見、画像所見に関して検討した。男性59例、女性55例、平均年齢は48歳。好発部位は回盲部、横行結腸で、主な臨床症状は腹痛、腹部腫瘤であった。腫瘤は可動性不良で硬く、圧痛を伴う点が特徴であった。白血球数は約半数の症例が正常値であった。超音波、CT検査では境界不明瞭、内部不均一な腫瘤として描出される場合が多く、腫瘤内の膿瘍腔、腫瘤周囲の腸管壁の肥厚、腫瘤周囲脂肪組織のCT値の上昇が診断に有用と考えられた。注腸所見では、腸管壁の圧排像や狭窄像に加え、粘膜面が比較的正常である点が特徴であった。

Key word: abdominal actinomycosis

はじめに

腹部放線菌症の臨床上的問題点は、術前診断が困難な点にある。最近われわれは、術前に回盲部悪性腫瘍を疑い、多臓器合併切除を行った腹部放線菌症を経験したので、腹部放線菌症の本邦報告手術例121例の集計結果をもとに、本症の術前診断に有用な臨床所見、画像所見に関する考察を加え報告する。

症 例

患者：53歳、女性

主訴：右下腹部有痛性腫瘤

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：44歳時、右乳癌にて右乳房切断術

現病歴：1991年8月に軽度の下腹部痛が出現し近医受診し注腸を施行されるも異常なし。以後も時々、下腹部痛を自覚するも放置。11月に右下腹部痛増強し、近医受診。右下腹部腫瘤を指摘され、当院産婦人科受診。12月5日消化管腫瘍の疑いにて当科紹介入院となった。

入院時現症：体格中等度。栄養良好。黄疸、貧血は認めず。熱発なし。表在リンパ節は触知せず。胸部は異常なし。腹部は全体に平坦であるが、右下腹部に超

手拳大、弾性硬で表面不整、境界不明瞭、圧痛を伴い、後腹膜に固定され、可動性不良な腫瘤を触知した。

入院時検査成績：白血球数9,800、血小板数41.2万、CRP(+)、他の検査成績に異常は認めなかった(Table 1)。

腹部超音波所見：回盲部に5×4cmの境界不明瞭、内部不均一な腫瘤を認めた。腫瘤全体はlow echoicで、腫瘤内部には一部high echoicな部位を認めた(Fig. 1)。

腹部CT所見：回盲部に境界不明瞭で内部不均一な腫瘤を認め、腫瘤に近接する腸管壁の肥厚、腫瘤周囲脂肪組織のCT値の上昇を認めた(Fig. 2)。

Table 1 Laboratory data on admission

RBC	488×10 ⁴ /mm ³	TP	7.4 g/dl
WBC	9,800/mm ³	Alb	4.4 g/dl
Hb	13.2 g/dl	T.B.	0.3 mg/dl
Ht	40.5 %	GOT	19 IU/l
Plt	41.2×10 ⁴ /mm ³	GPT	23 IU/l
Na	144 mEq/l	LDH	147 IU/l
K	40 mEq/l	Al-P	220 IU/l
Cl	101 mEq/l	Amylase	160 IU/l
BUN	9 mg/dl	CRP	6.3 mg/dl
Cre	0.8 mg/dl	CEA	0.5↓ ng/dl
Glucose	83 mg/dl	CA19-9	10↓ IU/ml

<1992年11月11日受理>別刷請求先：川村 弘之

〒467 名古屋市瑞穂区瑞穂町川澄1 名古屋市立大学医学部第2外科

Fig. 1 Ultrasonography showed a poorly defined mass in the ileocecal region. The mass was generally low-echoic, but high-echoic regions were observed in the interior of the mass

Fig. 2 Computed tomography showed a poorly defined and nonhomogeneous mass in the ileocecal region as well as thickening of the intestinal wall adjacent to the mass and increased in the CT value in the adipose tissue around the mass

注腸造影 X 線検査所見：S 状結腸は腫瘤に一致した部位で apple core 様の狭窄像を呈した。狭窄部には鋸歯状変化を認めた (Fig. 3)。

以上の所見から、炎症性腫瘤を疑ったが、術前に行った腫瘍スミア細胞診で adenocarcinoma の診断をえた

Fig. 3 Barium enema study showed an apple-core like constriction in the sigmoid colon. The constriction site was denticulated, and nodular changes were observed in the mucosal surface

ため、回盲部悪性腫瘍または右卵巢癌のS状結腸浸潤の診断にて、12月10日手術を施行した。

手術所見：下腹部正中切開にて開腹、盲腸左縁に10×9cmの硬い腫瘤を認めた。腫瘤前面は大網、回腸が癒着し完全に被覆されていた。腫瘤は、回盲部、回腸、S状結腸、右卵巢卵管、後腹膜に強く癒着を認めた。術中所見からも悪性腫瘍の多臓器浸潤を疑い、手術術式は腫瘤を含め、腫瘤に癒着した回盲部、S状結腸、および回腸約100cmをen-blockに切除し、各腸管を端々吻合した。さらに単純子宮全摘出術を追加した。

切除標本所見：腫瘤は黄白色、充実性で中心部には壊死を伴う小膿瘍腔を認めた。虫垂、右卵巢は腫瘤内

に存在し壊死に陥っていた。腫瘍浸潤と考えられたS状結腸は、内腔が示指大に狭小化し、粘膜面は結節像を呈し、その剖面は、粘膜下から漿膜にかけ、瘢痕性肥厚を認めた (Fig. 4)。

病理標本所見：腫瘤は著明な線維性結合組織と肉芽組織の増生、および膿瘍を伴う炎症細胞浸潤を認めた。腫瘤内に放線菌塊 (Druse) を認め、放線菌症と診断された (Fig. 5)。右卵管、子宮、陰には悪性所見は認めず、術前の細胞診の結果は偽陽性と判明した。

術後経過：術後第24病日目に癒着性腸閉塞にて再開腹したが、腹腔内に放線菌症の再発は認めなかった。診断確定後、AB-PCを1.5g/day、3か月間、経口投与し、現在、再発は認めていない。

考 察

腹部放線菌症は、主としてグラム陽性、嫌気性菌の *Actinomyces israelii* の感染による慢性化膿性肉芽腫性疾患で、本菌に有効な抗生物質、ペニシリンの開発以後、報告例は減少し現在は極めてまれな疾患である¹⁾。

腹部放線菌症は放線菌症全体の約20%を占めるとされ²⁾、好発部位は回盲部、横行結腸とされている³⁾。

発症機序は、口腔内常在菌の放線菌が、炎症、外傷、異物により生じた腸管粘膜損傷部から組織内に侵入し発症する内因性感染と考えられており⁴⁾、背景因子として宿主の免疫能低下の関与が示唆されている⁵⁾。

臨床経過は腹部不定愁訴のみの初発期、炎症性肉芽腫を形成する腫瘤形成期、他臓器または腹壁と瘻孔を形成する瘻孔形成期に分類される⁶⁾。ほとんどの症例が腫瘤形成期に発見され、さらに腫瘤は周囲臓器に浸潤性に増大し、悪性腫瘍との鑑別が困難なため、術前に悪性腫瘍を疑い拡大切除され、術後の病理学的検索にて初めて本症と診断される場合が多い。

術前の確定診断は、腫瘤の経皮的穿刺細胞診における放射菌塊の発見によるか、穿刺液培養で放線菌を証明することにより得られる⁷⁾⁸⁾。しかし、今回の症例のように、癒着した腸管が腫瘤周囲を被覆した状態では穿刺は危険であり、穿刺後に膿瘍の腹腔内播種を来した報告³⁾もあるため、穿刺の適応症例は限定される。また穿刺可能な場合でも、穿刺液細胞診による放線菌塊の検出率は低いとされる⁹⁾。本邦報告例においても術前に病理学的診断が得られた症例は121例中2例しかなく、術前確定診断はきわめて困難である。

これまで本症は一般に臨床所見、画像所見ともに特徴的な所見が乏しいとされてきた。しかし術前の病理

Fig. 4 In the resected specimen, the lumen of the sigmoid colon, which was considered to be invaded by the tumor, was narrowed to a size of the index finger. The mucosa showed circatricical thickening from the submucosa to the serosa

Fig. 5 Microscopic examination showed actinomycotic granules (Druse) surrounded by inflammatory cells (Hematoxylin-Eosin stain, ×100)

学的診断が困難なことから、本症の臨床的特徴を解明し、術前に臨床診断をつけることが重要と考えられる。

そこで今回、自験例を含め、1957年から1991年までの腹部放線菌症の本邦報告手術例121例を集計し、術前診断に有用な臨床所見、画像所見に関して検討した。

年齢は平均47.8歳(3歳~88歳)で40~60代に多く、男性59例、女性55例で、性差は認めなかった。

発生部位は回盲部34例(31%)、横行結腸25例(23%)、S状結腸7例(6%)、下行結腸、胃、腹壁が各6例、上行結腸、卵巣、肝臓が各4例、骨盤部3例、大網、空腸、膈、尿管が各2例、膀胱が1例であった。

臨床症状は腹痛80例(78%)、腹部腫瘍75例(73%)が多く、その他に腹部不快感、腹部重圧感が各1例であった。一般に腹痛は軽度の場合が多く、腹膜刺激症状を呈するほどの腹痛をきたす症例はまれであった。発熱に関しては、25例(21%)に認められた。

腹部腫瘍の所見では、腫瘍径は、(超)手拳大25例(47%)、鶏卵大17例(32%)、小児頭大8例(15%)であった。腫瘍の性状は、表面平滑(28例中22例、79%)境界明瞭(20例中12例、60%)、圧痛陽性(42例中38例、90%)、可動性不良(39例中38例、97%)、硬度は硬(42例中42例、100%)であった。腹部所見では、硬く、圧痛を伴い、可動性不良な腫瘍が本症に特徴的と考えられた。

血液検査では、白血球数増多は71例中38例(54%)に認め、33例(46%)は正常範囲内であった。白血球数が正常範囲でCRP陽性の症例は17例(52%)と比較的高率に認めた。この理由は、放線菌症による炎症が慢性的に進行し炎症所見が比較的軽度であること、受診時すでに抗生物質が投与されている場合が多く反応性に白血球数が減少していることが考えられた。腹部放線菌症は炎症性疾患であるが、約半数の症例で白血球数が正常範囲内、この所見も癌との鑑別を困難にする理由の1つである。血小板数の増加が鑑別に有用とした報告¹⁰⁾もあるが、血小板数の増加(40万以上)を認めたものは33例中13例(39%)であった。

腹部超音波検査では高エコーと低エコーが混在(21例中11例、52%)または、内部不均一(21例中6例、29%)とした所見が特徴的であった。その他に、充実性腫瘍内の微少膿瘍腔を描出した所見が有用と考えられた。

腹部CTでは、腫瘍は境界不明瞭(18例中7例、39%)、内部不均一(18例中11例、61%)とした所見が特徴で、他に、炎症波及による腫瘍周囲脂肪織のCT値

の上昇、炎症浸潤による腸管壁肥厚が診断に有用と考えられる。

注腸所見は病期初期には腫瘍による壁外性圧排像(48例中18例、38%)を呈し、病期進行につれ腸管壁に炎症が波及すると、腸管壁肥厚硬化による腸管内腔の狭窄像(48例中25例、52%)、apple core様の狭窄像(48例中4例、8%)を呈する。一方、腸管粘膜の変化は、壁不整(48例中6例、13%)、鋸歯状変化(48例中7例、15%)、大小不同の結節像(48例中6例、13%)が特徴である。また、腸管全周性の高度な狭窄をきたしても腸管粘膜面は比較的正常に保たれている場合(48例中12例、25%)が多く、この所見は、癌との鑑別に有用と考えられる。

腹部放射線菌症における以上の臨床所見、画像所見の特徴はいずれも本症のみに特異的ではないが、これらの所見を総合的に評価し、とくに悪性腫瘍、細菌性膿瘍と鑑別することが重要と考えられる。

腹部放線菌症の確定診断は、術後に切除標本の病理検索で放線菌塊を証明することにより得られる場合が多いが、病理診断上の問題点は、切除標本切片中の放線菌塊の検出率が低い点にある。鯨島¹¹⁾は143切片中3切片のみに、また佐伯¹²⁾は31切片中2切片のみに放線菌塊を確認しえたと報告しており、切除標本の病理診断には多数の切除切片における検索が必要である。

治療は腫瘍縮小効果、確定診断目的の点から、外科的切除が原則と考えられるが、ペニシリンをはじめとした抗生物質による補助療法が有効であるため、悪性腫瘍に準じた拡大切除は不要である¹³⁾¹⁴⁾。悪性腫瘍と鑑別が重要な疾患の1つとして本症を念頭において適切な診断をし、治療法を選択することが重要である。

文 献

- 1) 松尾吉恭, 占部 薫: アクチノミセス類, 戸田忠雄, 武谷健二 編. 戸田新細菌学. 南山堂, 東京, 1980, p467-470
- 2) Cope VZ: Actinomycosis. Practitioner 142: 319-326, 1939
- 3) 松村幸次郎, 田中千凱, 伊藤隆夫: 腹部放線菌症の1例, 自験例と本邦集計例の検討. 日外会誌 5: 629-632, 1987
- 4) 美甘義夫, 福島孝吉: 日本に於ける内科的真菌症について. 日化療会誌 6: 127-144, 1958
- 5) 新井 正: 放線菌症. 臨床医 11: 1761-1763, 1985
- 6) 穴沢雄作, 湯浅晋治, 石川洋三ほか: 豚アクトノミコーゼの手術治験例. 手術 19: 140-147, 1965

- 7) Lininger JR, Frable WJ: Diagnosis of pelvic actinomycosis by fine needle aspiration, A case report. *Acta Cytol* 28: 601-604, 1984
- 8) Brown JR: Human actinomycosis, study of 181 subjects. *Hum Pathol* 4: 319-330, 1973
- 9) 常葉信雄: Actinomycosis と Nocardiosis. 最新医 16: 522-531, 1961
- 10) Cedermarck B, Sundbland R, Willems JS: Suspected neoplasm of the liver with pulmonary metastases cured by surgery and penicillin. *Am J Surg* 141: 384-386, 1981
- 11) 鮫島朝之, 大井秀久, 唐仁原寛ほか: 回盲部放線菌症の1例. *日消病会誌* 84: 1304-1309, 1987
- 12) 佐伯啓三, 西俣嘉人, 美園俊明ほか: 大腸放線菌症の1例. *日本大腸肛門病会誌* 33: 22-25, 1980
- 13) Wangenstein OH: The role of surgery in the treatment of actinomycosis. *Ann Surg* 104: 752-770, 1936
- 14) Putman HC, Dockerty MB, Waugh JM et al: Abdominal actinomycosis, An analysis of 122 cases. *Surgery* 28: 781-800, 1950

A Case of Abdominal Actinomycosis with Resection of Multiple Organs

Hiroyuki Kawamura, Makoto Kataoka, Yoshiyuki Kuwabara, Yasuyuki Kureyama, Hiroshi Iwata,
Noriyuki Shinoda, Taketoshi Kashima, Atsushi Satou, Kouji Hattori,
Kouchirou Nakano and Akira Masaoka
Second Department of Surgery, Nagoya City University Medical School

A 53-year-old woman was admitted because of a mass in the right lower abdomen with tenderness. Laparotomy revealed a mass in the ileocecal region, and a diagnosis of a malignant neoplasm involving the ileum, sigmoid colon, and the right ovary was made. The tumor was removed with multiple organ resection, but a diagnosis of abdominal actinomycosis was established postoperatively by histopathological examination. A clinical problem with this disease is the difficulty in preoperative differentiation from malignant tumors. We reviewed the records of 121 patients (59 males and 55 females with a mean age of 48 years) who were operated on for abdominal actinomycosis between 1957 and 1991, and examined the clinical findings and image findings that may be useful for preoperative diagnosis of this disease. The tumor occurs commonly in the ileocecal region and the transverse colon, and abdominal pain and an abdominal mass were common clinical complaints. Characteristic features of the tumor were hardness, tenderness, and poorly movability. The white blood cell count was normal in about half the patients. Ultrasonography and computed tomography visualized the lesions as poorly defined and nonhomogeneous masses. Radiological findings of the abscess cavity in the tumor, thickening of the intestinal wall around the mass, and an increase in the computed tomography value in the adipose tissue are considered to be useful for diagnosis. Barium enema findings varied from displacement to circumferential constriction of the intestinal wall, but relative intactness of the mucosa was a common feature.

Reprint requests: Hiroyuki Kawamura Second Department of Surgery, Nagoya City University Medical School

1 Kawasumi, Nizuho-cho, Mizuho-ku, Nagoya, 467 JAPAN