症例報告

術前診断が困難であった胃放線菌症の1例

新日鐵室蘭総合病院外科¹⁾、北海道大学第2外科²⁾、同 第2病理³⁾

福永 亮朗^{1,2)} 鈴木 康弘¹⁾ 高橋 基夫¹⁾
狭間 一明^{1,2)} 吉田 直文^{1,2)} 川上 敏晃¹⁾
近藤 哲²⁾ 加藤 紘之²⁾ 藤田 美惺³⁾

症例は62歳の女性。嘔気、上腹部痛、体重減少を主訴に当院受診。エコー、CT、MRI、内視鏡検査などにて胃幽門側に内部不均一で周囲臓器との境界不明瞭な mass を認め、進行性の胃原発悪性腫瘍の術前診断にて横行結腸合併切除を伴う幽門側胃切除術を施行した。術後の病理組織学的検索にて悪性細胞は認められず胃放線菌症と診断された。術後1週間の抗生剤投与を行ったのみで再発兆候なく術後1年9か月を経た現在、経過観察中である。本症は現在では比較的まれな疾患となり術前診断は必ずしも容易ではないが、腹部腫瘍の鑑別診断の1つに考えることは重要であると考えられた。

はじめに

抗生剤治療の発達した今日、放線菌症は比較的まれな疾患であるが、中でも胃の放線菌症はさらにまれである。我々は術前悪性疾患として広範切除を施行し、術後に胃放線菌症と診断された1例を経験したので文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：62歳、女性

現病歴：H10年3月23日、嘔気、上腹部痛を主訴に近医受診。2か月で約10kgの体重減少もあったため当院消化器内科を受診した。腹部エコー検査にて胆石、総胆管結石を認め、また臍頭部と胃前庭部の間に3cm径の腫瘍性病変が疑われた。Computed tomography (以下、CT)では胃または大腸癌が疑われ入院の上、精査を施行した。

既往歴：糖尿病

術前検査所見：血液生化学、腫瘍マーカーなどには特に異常所見を認めなかった。胃透視検査では幽門部大彎側に最大径6cmの隆起性病変を認め、壁外性の圧迫が疑われた。十二指腸に特に異常を認めなかった (Fig. 1) 上部消化管内視鏡検査では十二指腸粘膜面に軽度の潰瘍を認め、生検が施行されたが正常粘膜組織と判断された。また幽門部後壁の腫瘍の中心に陥凹が

あり、開口しているように見えたため造影したところ病変部につながる大きさ約3.5cmの内腔が造影された (Fig. 2)。CTでは胃幽門側に5×4×3cmの不均一に enhance される病変を認め、胃または結腸の壁肥厚像

Fig. 1 Upper GI series showed a large mass suspected submucosal tumor in the greater curvature of the antrum 6cm in diameter (arrow)

Fig. 2 Upper GI endoscopy showed a submucosal tumor in the posterior wall of the antrum, with a fistula. Fistulography showed a lumen consecutive the tumor.

と考えられた。周囲への毛羽立ち像を伴っており悪性病変も疑われた。Magnetic resonance image (以下, MRI) には $5 \times 4 \times 3$ cm の T1 で low intensity, T2 で不均一な high intensity, ガドリニウムで不均一に enhance される病変を認めた。脾とは連続性はなく胃の腫瘍が最も疑われた。また胆嚢内に大きさ2mm~5mm 大の多数の胆石を認めた (Fig. 3)。腹部血管造影では右胃大網動脈領域に濃染像が認められた。Endoscopic ultrasonography (以下, EUS) では第4層 (mp) と連続性のある粘膜下の腫瘍性病変を認め、筋層由来の腫瘍と考えられた。

以上の検査結果より胃粘膜下腫瘍、胆石症の診断にて H10 年 6 月 8 日上腹部正中切開にて開腹すると胃幽門部後壁に 8×6 cm 大の腫瘍を認め、横行結腸と強く癒着していた。脾には特に異常を認めなかった。胃原発の悪性腫瘍と考え、横行結腸合併切除術を伴う幽門側胃切除術、Billroth II 法再建および胆嚢摘出術を施行した。なお術中に病変部の迅速病理診断を依頼したが、瘢痕組織のみで悪性所見はないとの返事を得た。切除標本の肉眼的所見では大網内に大きさ $8\text{cm} \times 6\text{cm}$

Fig. 3 Magnetic resonance imaging. T1 weighted image revealed a mass of low intensity, which was heterogeneously enhanced by Ga-DPTA. T2 weighted MRI image revealed a mass of high intensity, and gallbladder stone was pointed out.

の腫瘍を認め、胃壁、横行結腸と強く癒着しており、正常組織との境界は不明瞭であった。断面をみると内部には膿瘍の形成がみられた (Fig. 4)。病理組織学的には病変は胃漿膜脂肪嚢内にとどまっており、胃粘膜には病変を認めなかった。腫瘍壁に Actinomyces の菌塊が認められ、actinomyces 感染による慢性肉芽腫形成および炎症の波及に伴う脂肪嚢炎、脂肪壊死と診断された (Fig. 5)。術後経過は良好で術後19日に退院した。現在外来 follow 中であるが術後1年9か月を経た現在、再発なく社会復帰している。

Fig. 4 Macroscopic findings : The tumor was in the omentum, contained pus inside (arrow) strongly adhered posterior wall of the antrum and the transverse colon.

Fig. 5 Microscopic findings(HE, $\times 400$) : Actinomyces colony was present surrounded by inflammatory cells.

考 察

放線菌症は *Actinomyces israelii* の感染により膿瘍、瘻孔を形成する慢性化膿性肉芽腫性疾患であり、有効な抗生剤の開発により今日までは比較的まれとなっている。発症部位は顔面、頭頸部に多く、腹部放線菌症は放線菌症全体の約20%である¹⁾²⁾。腹部消化管放線菌症は口腔内、消化管に常在する放線菌症が、何らかの機転により損傷を受けた粘膜損傷部より組織内に侵入し発症する内因性感染と考えられている²⁾。その発症部位は横行結腸、回盲部などに多く胃放線菌症は比較的まれであり、本邦報告例をまとめた文献では松村ら³⁾の報告によると腹部放線菌症全体の11.3%、小澤ら⁴⁾の報告によると14.0%などとなっている。しかし最

近10年間の医学中央雑誌による胃放線菌症本邦報告例は1例のみであった⁵⁾。また欧米の報告も Medline により筆者らが検索した範囲では過去10年間で6例と少なかった。胃放線菌症は Perigastric type と Intramural type の2つの型にわけられる。前者はより一般的で胃または十二指腸に近接した腫瘍や膿瘍が特徴的である。胃や十二指腸潰瘍の穿孔や手術後の actinomyces による腹腔内感染により起こりうる。後者は胃壁内に放線菌が認められるもので、まれであり、1967年 Urdanate⁷⁾が8例をレビューしているに過ぎない。Intramural type が少ない理由としては胃内の pH が低く細菌の繁殖が妨げられるためであろうと考えられている¹²⁾。一般に消化管放線菌症は臨床症状、検査所見に特異的なものではなく、術前診断は困難である。胃放線菌症の臨床症状としては上腹部痛、発熱、腹部腫瘍、瘻孔形成、体重減少、上部消化管出血などがみられるとされている⁷⁾⁸⁾。一般検査所見では血小板の増加(60万以上)が他の感染症との鑑別に有用との報告⁹⁾もあるが必ずしも増加するわけではない⁵⁾。腹部エコー検査では高エコー像と低エコー像が混在、または内部不均一な腫瘍像を示し、腹部 CT では境界不明瞭、内部不均一な腫瘍を示す所見が特徴的であるとされている⁵⁾。しかし本症に特異的なものではなく、悪性疾患や他の炎症性疾患との鑑別は難しい⁵⁾¹⁰⁾¹¹⁾。胃放線菌症の内視鏡所見では粘膜面に亀裂、潰瘍、出血などを伴う腫瘍がみられることもあるが、粘膜面に異常を認めない場合もある⁸⁾¹²⁾。腹部放線菌症の術前の確定診断には膿汁や組織からの菌塊の証明、もしくは培養による菌の検出が必要であるがその検出率は低く術前に確定診

断がつくことは極めてまれである^{3)-5)・7)-11)}。確定診断は病理検索で放線菌塊(Druse)を証明することにより得られる場合が多く、術後の病理組織診断にて初めて放線菌症と判明する場合もある^{5)・10)・12)}。治療は一般的にはペニシリンの長期大量投与と適切な外科療法の併用が基本であると考えられている^{13)・14)}。しかし実際には術中所見においても悪性腫瘍との鑑別が困難なため拡大切除を施行される場合も多い^{13)・10)}。術後の抗生剤投与についてはペニシリンの長期大量療法が良いとされているが、術後1週間程度の抗生剤投与のみで再発を認めていない場合もあり、病巣の完全摘除がなされた場合、必ずしも抗生剤の長期投与は必要ないものと考えられる^{10)・13)・14)}。

以上のことをふまえ本症例を考察した。最終診断を得てからふり返ってみると本症に特徴的な臨床症状を呈していたが、体重減少から悪性疾患も疑った。EUSでは粘膜炎下腫瘍の所見であり、CT、MRIも胃粘膜炎下原発の悪性腫瘍を疑わせる所見であった。術前生検でも診断に至らず、また胃粘膜炎より腫瘍部につながる内腔が造影され、膿瘍腔を造影したのと考えられるが、当時は異所性脾の可能性などを疑った。術中所見からも悪性腫瘍の大網、横行結腸浸潤と判断され、結果的には拡大手術を施行した。術後病理組織診断ではじめて放線菌症と診断され胃内腔と膿瘍内腔との交通が認められたことから胃壁からの発生と考えられた。病理組織所見では病変部は漿膜脂肪織内にとどまっており、perigastric typeの胃放線菌症と最終診断された。何らかの機転により胃内腔から放線菌が侵入したのと思われるがその原因となるような既往はなく感染経路は不明であった。抗生剤の追加投与は特にしていないが術後1年9か月の現在、再発を認めていない。

本症例にご助言いただきました北海道大学第二病理学教室藤田美樹先生に深謝致します。

文 献

- 1) Cope VZ : Actinomycosis. Practitioner 142 : 319-326, 1939
- 2) 美甘義夫, 福島幸吉 : 日本における内科的真菌症について. 日治療会誌 6 : 127-144, 1958
- 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 88 : 629-632, 1987
- 4) 小沢 洋, 綿引 元, 中野 哲ほか : 横行結腸放線菌症の1例. 胃と腸 16 : 1147-1153, 1981
- 5) 川村弘之, 片岡 誠, 桑原義之ほか : 多臓器切除を要した腹部放線菌症の1例. 日消外会誌 26 : 1100-1104, 1993
- 6) 大林利博, 佐野 博, 片田直幸ほか : 胃放線菌症の1例. Gastroenterol Endosc 30 : 2126, 1988
- 7) Urdanate LF, Belin PR, Cueto J et al : Intramural gastric actinomycosis. Surgery 62 : 431-435, 1967
- 8) Olmen GV, Larmuseru MF, Geboes K et al : Primary Gastric Actinomycosis : A case Report and Review of the Literature. Am J Gastroenterol 79 : 512-516, 1984
- 9) Cedermark B, Sundblad R, Willems JS : Suspected neoplasm of the liver with pulmonary metastases cured by surgery and penicillin. Am J Surg 141 : 384-386, 1981
- 10) 石塚文雄, 高橋規一, 舟他 隆ほか : 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
- 11) 片村 宏, 坂下 武 : 大網原発腹部放線菌症の1例. 日臨外医会誌 55 : 3201-3203, 1994
- 12) Skouetelis A, Panagopoulos C, Kalfarentzos F et al : Intramural gastric actinomycosis. South Med J 88 : 647-650, 1995
- 13) Putmann HC Jr, Docherty MB, Waguh JM : Abdominal actinomycosis : An analysis of 122 cases. Surgery 28 : 781-800, 1950
- 14) Harvey JC, James MD, Centrell R et al : Actinomycosis : Its recognition and treatment. Ann Intern Med 46 : 868-885, 1957

A Case of Primary Gastric Actinomy Cosis

Akira Fukunaga^{1,2)}, Yasuhiro Suzuki¹⁾, Motoo Takahashi¹⁾, Kazuaki Hazama^{1,2)},
Naofumi Yoshida^{1,2)}, Toshiaki Kawakami¹⁾, Satoshi Ko-ndoh²⁾,
Hiroyuki Katoh²⁾ and Miri Fujita³⁾

¹⁾Department of Surgery, Sinnitetsu Muroran General Hospital

²⁾Second Department of Surgery, Hokkaido University School of Medicine

³⁾Second Department of Pathology, Hokkaido University School of Medicine

A case of primary gastric actinomycosis in which the preoperative diagnosis was difficult is reported. A 62-year-old woman who complained of nausea, epigastric pain, and weight loss was admitted to our hospital. Abdominal ultra-sonography, computed tomography, MRI, and gastroduodenoscopy revealed a primary gastric tumor that was suspected of being malignant. Distal gastrectomy with transverse colectomy was performed. Histopathological studies of the resected material revealed characteristic sulfur granules in the indurated mass, and a diagnosis of gastric actinomycosis was made. No evidence of malignancy was found. Postoperative antibiotic therapy was performed for only 1 week, and there has been no evidence of recurrence. In recent years, this disease are relatively rare, and it is not always easy to diagnose this disease. But it is important to be taken into consideration in the differential diagnosis of the abdominal mass.

Key words : gastric actinomycosis, peritonea abcsess

[Jpn J Gastroenterol Surg 34 : 470 474, 2001]

Reprint requests : Akira Fukunaga Department of Surgery, Hakodate Medical Association Hospital
2 10 10 Tomioka-cho, Hakodate, 041 8522 JAPAN