症 例

IUD 装着後の放線菌感染症が術後細胞診により確定した 1 例

浜口 大輔¹⁾ 松田 勝也¹⁾ 北島 道夫¹⁾ 小寺 宏平¹⁾森山 伸吾²⁾ 中島 久良³⁾ 増崎 英明¹⁾長崎大学病院産科婦人科¹⁾, 島原マタニティ病院²⁾, 長崎大学医学部保健学科³⁾

背景：放線菌症の確定診断には細菌培養検査による放線菌の証明が必要であるが、嫌気性菌である *Actinomyces israeli* の分離培養は容易でない。今回、子宮内避妊器具 (intra uterine contraceptive device ; IUD) を長期間装着後、骨盤内放線菌症を発症し、摘出した付属器膿瘍内容物の塗抹細胞診で放線菌症と診断された 1 例を経験したので報告する。

症例：50 歳，2 経妊 2 経産婦。約 20 年前に IUD を装着し，以来未交換であった。下腹痛を伴った発熱を認め，前医で抗菌剤治療を受けたが症状の再燃を反復していた。ダグラス窩膿瘍が疑われ，緊急開腹術を施行した。術後，症状は軽減したが，7 日後には再び発熱を認め，ダグラス窩膿瘍の再発を指摘され，当科に紹介された。当科初診時，経膈超音波断層法および MRI で子宮内に IUD を認めた。抗菌剤治療施行後，単純子宮全摘出術，両側付属器摘除術および癒着剥離術を行った。摘出標本では子宮体部内腔に IUD を認めた。摘出標本の剖面細胞診では，多数の好中球，組織球を背景に不定形の菌塊が散見され，Grocott 染色で多数の微細な分枝を有する菌糸が確認され放線菌症と診断された。

結論：IUD 装着者における骨盤内感染症の場合，細胞診が鑑別診断の一助になると思われた。

Key words : Actinomycosis, Cytology, Intra uterine contraceptive device (IUD), Pelvic inflammation, Case report

I. はじめに

放線菌症 (Actinomycosis) は嫌気性グラム陽性桿菌 *Actinomyces israeli* による比較的まれな慢性化膿性疾患であり，婦

人科領域では子宮内避妊器具 (intra uterine contraceptive device ; IUD) との関連が指摘されている¹⁾。また，嫌気性菌であるため細菌培養検査で検出されにくく，治療前あるいは手術前診断の困難な場合が少なくない²⁾。今回，骨盤内膿瘍の臨床診断で 2 度の開腹術を施行され，摘出した付属器膿瘍内容物の塗抹細胞診で放線菌症と診断された症例を経験したので報告する。

II. 症 例

症 例：50 歳，2 経妊 2 経産。

主 訴：下腹痛，発熱。

月経歴：初経 12 歳，周期 26 日型整順，持続 6~7 日間。

既往歴：約 20 年前に IUD 装着（以来，未交換）。

家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴：2007 年下腹痛を伴った 38℃ 台の発熱を認め，前医で抗菌剤の静脈内および経口投与を受けたが，症状の

A case of pelvic actinomycosis after prolonged intra uterine contraception diagnosed by postoperative cytology

Daisuke HAMAGUCHI¹⁾, M. D., Katsuya MATSUDA¹⁾, C. T., I. A. C., Michio KITAJIMA¹⁾, M. D., Kohei KOTERA¹⁾, M. D., Shingo MORIYAMA²⁾, M. D., Hisayoshi NAKAJIMA³⁾, M. D., Hideaki MASUZAKI¹⁾, M. D.

¹⁾Department of Obstetrics and Gynecology, Nagasaki University School of Medicine

²⁾Shimabara Obstetrics and Gynecology Hospital

³⁾Department of Health Sciences, Nagasaki University School of Medicine

論文別刷請求先 〒852-8501 長崎県長崎市坂本 1 の 7 の 1 長崎大学病院産科婦人科 浜口大輔

平成 21 年 1 月 23 日受付

平成 21 年 8 月 11 日受理

Photo. 1 Transvaginal ultra sonography showing a mass lesions with variable echogenicity.

Photo. 2 Pelvic T2 magnetic resonance imaging (MRI).
Variable-intensity mass lesions could not be distinguished from the bowels.

Photo. 3 Pelvic T1 MRI. Note the intra-uterine device.

再燃を反復していた。その後、38℃台の高熱と水溶性下痢が出現し食欲低下を認めた。前医で腹部超音波断層検査、X線CTおよび血液検査が適用され、ダグラス窩膿瘍が疑われたため、翌日、緊急開腹術が施行された。骨盤腔には少量の白濁した漿液性腹水が認められ、右側の卵管と卵巣は鶏卵大で一塊となり、子宮と強固に癒着していた。また、小腸の一部がダグラス窩腹膜に癒着し、剥離操作により黄色泥状の膿汁が多量に流出した（細菌培養検査は陰性）。癒着剥離と排膿後、腹腔内を温生理食塩液で洗浄し、ダグラス窩にドレーンを留置した。術後、症状は軽減し退院したが、7日後には再び38℃台の発熱を認め、再び前医を受診した。血液検査で炎症の再燃（白血球1万6000/ μ l, CRP 12.66）およびX線CTにおけるダグラス窩膿瘍の再発を指摘された。なお、経腔超音波断層検査で子宮内にIUDが認められたが、強固な癒着のため抜去不可能であった。ダグ

ラス窩膿瘍の精査および加療目的で当科に紹介された。

診察所見：外子宮口は完全に閉鎖し、子宮腔からの分泌物は認められなかった。子宮は前傾前屈、鵝卵大、比較的硬く、可動性不良であった。両側付属器領域に後腔円蓋を通して硬い抵抗を触知し、圧痛を認めた。

末梢血液所見：白血球2万600/ μ l, 血小板46.2万/ μ l, Na 135mE/l, K 4.3mE/l, Cl 98 mE/l, 尿素窒素 10.0 mg/dl, クレアチニン 0.57 mg/dl, 総蛋白 7.8 g/dl, アルブミン 3.2 g/dl, AST 41 IU/l, ALT 50 IU/l, ALP 591 IU/l, CRP 11.94 mg/dl。

画像所見：経腔超音波断層法では子宮内にIUDを認め、子宮右背側からダグラス窩にかけてさまざまなエコー輝度の腫瘤像が認められた（Photo. 1）。MRIでは子宮右背側からダグラス窩にかけて不均一な信号強度を示す腫瘤像がみられ、周囲腸管との区別が困難であった（Photo. 2）。子宮内にはIUDを認めた（Photo. 3）。

術前細胞診：子宮頸部擦過細胞診クラスI, 内膜細胞診

Photo. 4 Gross appearance of uterus and swollen adnexa. Note the intrauterine device.

Photo. 5 Right fallopian tube lumen. Mural thickness increased due to inflammation. Fallopian tube contents are yellowish and muddy.

Photo. 6 Cut surface of the right fallopian abscess. Note protean clusters in numerous inflammatory cells (Pap. staining, ×10).

Photo. 7 Bacterial threads are radially arranged with numerous inflammatory cells (Pap. staining, ×40).

は外子宮口閉鎖のため採取できず。

入院後経過：ピペラシリン 2 g/day + クリンダマイシン 1200 mg/day の静脈内投与を開始した。投与 3 日目には 36℃ 台に解熱し、白血球数および CRP 値は軽快した。長期に及ぶ IUD が原因で骨盤内膿瘍をきたしたと考えられることを説明し、単純子宮全摘出術、両側付属器摘除術および癒着剥離術を行った。

腹腔内所見：腹水は認めず。子宮、両側付属器および S 状結腸は広範囲に炎症性癒着を呈していた。子宮は鷲卵大、比較的硬で、可動性は著しく制限されていた。右側卵管は鷲卵大に腫大し、左側卵管にも軽度の腫脹を認めた (Photo. 4)。

摘出物肉眼所見：子宮体部内腔に IUD (リップスループタイプ) を認め、その一部は内膜組織内に埋没していた (Photo. 4)。右側卵管内腔には膿汁を認め、壁の著明な肥厚がみられた (Photo. 5)。

右側卵管膿瘍断面の細胞診所見：多数の好中球、組織球を背景に不定形の菌塊が散見された (Photo. 6)。一部の菌塊では、フィラメント状菌糸の放射状配列が認められた (Photo. 7)。菌塊の Grocott 染色で、多数の微細な分枝を有する菌糸が確認された (Photo. 8)。

病理組織診断：卵管周囲の結合組織内に慢性および急性炎症細胞からなる肉芽組織が形成されていた。多数の切片で検索したが、放線菌を思わせる菌塊は認められなかった。

膿汁の細菌培養検査：陰性。

術後経過：ピペラシリン 2 g/day + クリンダマイシン 1200 mg/day を術後 4 日間静脈内投与した後、5 日目よりアモキシシリン 750 mg 分 3/day の経口投与に変更し、術後 14 日目に退院した。術後 1 ヶ月の診察では、再発徴候は認め

Photo. 8 Numerous bacterial threads are positive for Grocott staining ($\times 40$).

られていない。

III. 考 察

放線菌症は、口腔、上気道あるいは腸管などの粘膜に常在する嫌気性グラム陽性桿菌が、粘膜の損傷などを契機として組織内に侵入し発症するまれな疾患である。原因菌としては *Actinomyces israeli* が最も多い³⁾。好発部位は顔面・頸部、腹部および胸部で、それぞれの頻度は 40～60%、20～30% および 10～20% とされ、腹部では回盲部発症が最も多い⁴⁾。女性性器における放線菌症は従来は回盲部からの蔓延と考えられていたが、Brenner ら⁵⁾ および Henderson ら⁶⁾ の IUD 装着に基づく上行性感染例の報告以来、本症と IUD とのかかわりが議論されるようになった⁷⁻⁹⁾。Hager ら¹⁰⁾ は IUD 装着 50 例のうち 8% の例の子宮頸部パパニコロウスメアに放線菌を認め、対照の 50 例では全く認めなかったと報告している。また、Keebler ら¹¹⁾ は女性内性器および骨盤における放線菌感染率は IUD 装着期間 1～2 年では 8.4%、2～3 年では 19.0% であったとし、藤原¹²⁾ は骨盤放線菌症の 91.3% は IUD 装着例であり、装着期間は平均 7.9 年であったと報告している。

腹部放線菌症は、腹痛、嘔吐、下痢、黄疸といった消化器症状のほか、体重減少、悪寒、弛張熱などを伴うこともあり、非特異的骨盤腹膜炎との鑑別がむずかしい。Cedermarck ら¹³⁾ は末梢血における血小板数の増加が他の感染症との鑑別に有用と報告しているが、本症例でも当科初診時の血小板数は 46.2 万/ μ l、入院時 61.0 万/ μ l と増加していた。

放線菌症の確定診断には細菌培養検査による放線菌の証明が必要であるが、嫌気性菌である *Actinomyces israeli* の分

離培養は必ずしも容易でない⁷⁾。多くの場合は病理組織標本あるいは細胞標本で硫黄顆粒 (sulfur granule) として認められる菌塊 (ドルーゼ: Druse) の証明をもって最終診断としているが、臨床診断にとどまることも多い¹⁴⁾。本症例でも膿汁の細菌培養検査は陰性であり、病理組織検査でも多数の切片を切り出して検索したが特異的像は認められなかった。しかし、摘出した右側卵管膿瘍剖面の塗抹細胞診で放線菌に特徴的な菌塊像を認め、菌塊の Grocott 染色で特異的な菌糸が確認されたため最終診断にいたった。

治療に関しては、従来よりペニシリンの大量長期投与が原則とされているが、投与量および投与期間に一定の基準は示されていない。また、放線菌症は肉芽を形成する傾向が強いため薬剤抵抗性となりやすく、本症例のように外科的療法の併用が有用であるとされている¹²⁾。

IV. おわりに

IUD を長期間装着後、骨盤内放線菌症を発症した 1 例を経験した。本症例では IUD 装着のエピソードから放線菌症が疑われたが、細菌培養検査および病理組織検査では放線菌は証明されなかった。しかし、摘出材料の剖面塗抹細胞診所見により最終診断にいたった。IUD 装着者における骨盤内感染症の場合、細胞診が鑑別診断の一助になると思われる。

Abstract

Background : We report a case of pelvic actinomycosis involving prolonged intra uterine contraceptive device (IUD) use diagnosed by post-operative cytology.

Case : A 50-year-old gravida 2 para 2 woman was admitted for continuous postlaparotomy lower abdominal pain and fever develop 20 years after having an IUD inserted. Laparotomy following antibiotic therapy showed a swollen right adnexal lesion.

Papanicolaou-stained smears of the right fallopian tube showed actinomyces-like organisms with radially arranged bacterial threads. The pathology specimen showed no actinomycosis.

Conclusion : Smears are helpful in diagnosing actinomycosis in those with pelvic inflammation following prolonged IUD use.

文 献

- 1) Charnock, M., Chambers, T.J. Pelvic actinomycosis and intrauterine contraceptive devices. Lancet 1979; 9: 1239-1240.
- 2) 西條良香, 小林津月, 寺澤晃司, 湯浅敏正, 岡山哲也, 森下一・ほか. 卵巣悪性腫瘍が疑われた卵巣放線菌症の 1 例. 産科と婦人科 1998; 65: 815-818.

- 3) Bennhoff, D. Actinomycosis : diagnosis and therapeutic considerations and a review of 32 cases. *Laryngoscope* 1984 ; 94 : 1198-1217.
- 4) 池本秀雄, 渡辺一功. 新内科学大系/55. 感染症Ⅳ. 東京 : 中山書店 ; 1975. 3-11.
- 5) Brenner, R. W., Gehring, II, S. W. Pelvic actinomycosis in the presence of an endocervical contraceptive device. *Obstet Gynecol* 1967 ; 29 : 71-73.
- 6) Henderson, S. R. Pelvic actinomycosis associated with an intrauterine device. *Obstet Gynecol* 1973 ; 41 : 726-732.
- 7) 白井 彩, 町田稔文, 鈴木理絵, 松本加代, 菊池紫津子, 紙谷節夫・ほか. 放線菌症と判明した骨盤内腫瘍の 2 例. *産科と婦人科* 2000 ; 67 (6) : 817-821.
- 8) Kalaichelvan, V, Maw, A. A., Singh, K. Actinomyces in cervical smears of women using the intrauterine device in Singapore. *Contraception* 2005 ; 73 (4) : 352-355.
- 9) Kayikcioglu, F., Akif, Akgul, M., Haberal, A., Faruk, Demir, O. Actinomyces infection in female genital tract. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2005 ; 118 : 77-80.
- 10) Hager, W. D., Majmudar, B. Pelvic colonization with actinomyces in women using intrauterine contraceptive device. *Am J Obstet Gynecol* 1979 ; 135 : 680-684.
- 11) Keebler, C., Chatwani, A., Schwartz, R. Actinomycosis infection associated with intrauterine contraceptive devices. *Am J Obstet Gynecol* 1983 ; 145 : 596-599.
- 12) 藤原道久. PID と放線菌感染症. *産婦人科の実際* 2000 ; 49 (5) : 585-595.
- 13) Cedermark, B., Sundblad, R., Willems, J. S. Suspected neoplasm of the liver with pulmonary metastases cured by surgery and penicillin. *Am J Surg* 1981 ; 141 : 384-386.
- 14) 島袋 史. IUD 使用者の骨盤放線菌症 11 例に関する臨床的検討. *産科と婦人科* 2003 ; 70 (9) : 1264-1268.