症 例

Sarcoma と考えられた腹部放線菌症の 2 例

板橋中央総合病院外科

石 塚 文 雄 高 橋 規 一 舟 田 隆
増 田 浩 渡 辺 哲 弥

放線菌症は、口腔内や消化管に常在し嫌気的狀態で發育する放線菌 *Actinomyces israeli* によりひき起こされる慢性化膿性肉芽腫性炎症である。顔頸部、胸部、腹部放線菌症に大別され、著明な線維化を伴い腫瘤を形成するため腹部では悪性腫瘍との鑑別が困難である。

我々は、大きな腹部腫瘤が腹壁、大網、結腸へ浸潤し、Sarcoma の診断で手術したところ組織学的に放線菌症であった腹部放線菌症の 2 例を経験したので報告する。

症例 1 は 64 歳女性で、臍周囲の 9×23cm の腹部腫瘤を主訴とし、超音波、CT で腹壁の Sarcoma と診断した。手術所見では、臍と皮下脂肪組織から横行結腸まで巻き込んだ 1 塊の腫瘤であり、腹壁、大網、横行結腸を含め en block に切除した。症例 2 は 48 歳男性で、8 カ月前右上腹部に 4×5cm の腫瘤あるも放置、今回 10×12cm と増大し、注腸、超音波、CT、血管造影から大網原発の Sarcoma と診断し手術を行なった。腹壁、大網、横行結腸、肝右葉前縁に浸潤した腫瘤を en block に切除した。2 症例とも切除標本剖面で膿瘍形成があり、組織学的に明瞭な放線菌塊を認め、放線菌症と診断された。

最近では発生頻度は著しく減少の傾向にあるとはいえ、腹部腫瘤の診断にあたって、腹部放線菌症の存在を念頭におく必要があると考えられた。その治療は、抗生物質の長期大量投与と外科療法の併用が必要と言われているが、本稿の 2 症例とも広範な病巣切除により完治し得たと考えられた。

索引用語：放線菌症、腹部放線菌症、腹部腫瘤

I. 緒 言

放線菌症は、*Actinomyces israeli* により惹起される慢性化膿性肉芽腫性炎症で、顔面、頸部に好発し、瘻孔を形成すると難治性であるが、近年抗生物質の使用により治療成績も向上し、発生頻度も著しく減少の傾向にある。

最近、我々は大きな腹部腫瘤が腹壁、大網、結腸へ浸潤し、Sarcoma の診断で手術したところ、組織学的に放線菌症であった腹部放線菌症の 2 手術例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

II. 症 例

症例 1：64 歳、女性。

主訴：腹部腫瘤

家族歴、既往歴：特記すべきことはない。

現病歴：昭和 58 年 6 月頃より臍周囲にくるみ大の腫瘤が出現し、近医を受診し、脂肪腫と言われ放置していた。以後腫瘤は漸次増大し昭和 58 年 10 月に至り、軽

度疼痛、皮膚発赤が出現したため当科を受診、入院した。

入院時現症：身長 150cm、体重 64kg、血圧 110/58、脈拍 96/分整、体温 36.3℃であった。腹部に臍を中心として 9×23cm 大の腫瘤を触知した。腫瘤は境界鮮明で、弾性硬、表面平滑、充実性で、底部は固定され皮膚に軽度発赤を伴っていた。その他理学的所見には異常は認めなかった。

臨床検査成績：白血球数 13,600/mm³ と中等度の増加を、血小板数 43.2×10^4 /mm³ と軽度増多を示したが、貧血はなかった。CRP (6+) と強陽性であった。その他の一般検査成績に異常は認めなかった。

超音波検査：腹壁皮下に厚さ 5cm の一部 high echogenic な部分を混在するが、全体として low echogenic な充実性の腫瘤影を認めた。膿瘍腔を示唆する所見は認められなかった (図 1)。

腹部 CT 所見：腹壁皮下正中左側に、辺縁不整であ

図1 症例1. 超音波像

図2 症例1. CT像

るが、一様の濃度の high density な大きな腫瘍を認めた。腹腔内への浸潤の有無は判定できなかった(図2)。

以上の所見より腹壁発生の sarcoma を考え手術を行なった。

手術所見：昭和58年10月19日全麻下にて手術施行。横切開を行なうと臍周囲脂肪組織から横行結腸まで巻き込んだ1塊の腫瘍があった。硬さ、周囲への浸潤の所見から sarcoma と考え、臍を含む皮膚の一部、腹直筋及び横行結腸を含め en block に切除した。腹直筋及び筋膜の欠損部はテフロンパッチを用いて修復した。

切除標本肉眼所見：腹部皮膚、横行結腸の一部を含

め16×11×8.5cmの腫瘍塊であり、断面中央に6.0×5.5×4.5cmに及ぶ線維性被膜に被われた膿瘍を認めた。膿瘍周辺は硬い結合組織及び脂肪よりなる肉芽組織が横行結腸と連続性の腫瘍を形成していた。結腸粘膜は正常であった(図3)。

病理組織所見：線維芽細胞の増殖とリンパ球、形質細胞を中心とする炎症性細胞浸潤を伴う著明な線維性結合組織の増殖を示し、膿瘍中に明瞭な放線菌塊を認めた。菌塊はHE染色により外層はエオジン好性、中心部はヘマトキシリン好性を示し、Grocott染色では外層、中心部とも黒色調明瞭に染色された(図4)。

術後は一週間セフェム系抗生剤を投与したのみであるが、一年半後の現在も再発の徴なく健康である。

症例2：48歳、男性。

主訴：腹部腫瘍。

家族歴：特記すべきことはない。

既往歴：20年前左腎摘出術(腎結核)。

現病歴：昭和58年3月上旬右上腹部の腫瘍に気が付き、3月下旬精査目的で当院消化器科へ入院した。右上腹部に4×5cmの平滑、硬の腫瘍を触知し、超音波、CT、注腸等精査するも確定診断は得られず、吸引細胞診ではClass IIの所見であった。4月下旬自己退院し以後受診しなかった。11月初旬腫瘍の増大と圧痛出現の為、消化器科へ再入院した。

入院時現症：身長160cm、体重70kg、血圧150/94、脈拍78/分整、体温36.8℃。右上腹部に10×12cm大、境界鮮明な硬い腫瘍を触知し、軽度の圧痛があった。

臨床検査成績：赤血球数 $401 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、Hb 11.0g/dl、Ht 36%、白血球数 $14,200/\text{mm}^3$ 、血小板数 $64.2 \times 10^4/\text{mm}^3$ と軽度貧血、中等度白血球増加、血小板増加を認めた。CRP(6+)、赤沈105/hと異常高値を示したが、その他の検査成績は正常であった。

超音波検査：肝下面に接し充実性の腫瘍影を認め、周辺部は low echogenic であるが中心部は不整塊状の high echogenic pattern を示した(図5)。

腹部CT所見：辺縁不明瞭な腫瘍が肝、腹壁腹膜、腸管に浸潤し、内部は low density の部分と high density の部分が複雑に混在していた(図6)。

注腸透視：横行結腸右1/3の部に圧排像と辺縁鋸歯状の像を認めるが、粘膜構造は保たれており、周囲からの浸潤性変化が主体であると考えられた(図7)。

腹腔動脈造影：右胃大細動脈の分枝が拡張蛇行し、血管増生も認められ、腫瘍の栄養血管と考え大細原発の Sarcoma と診断した(図8)。

図5 症例2. 超音波像

図6 症例2. CT像

吸引細胞診所見：超音波ガイド下の吸引細胞診では Class II, 変形した好中球とともに少数のリンパ球, 線維細胞が認められ, 炎症性肉芽組織の像であった。

血管造影所見から Sarcoma を考え, β トロン2,400 rad の術前照射後外科へ転科した。照射による腫瘍縮小効果は認められなかった。

手術所見：昭和58年12月6日全麻下で手術施行。右上腹部傍腹直筋切開を行なうと, 前腹筋群に浸潤し大網, 横行結腸を巻き込み, 肝右葉前縁に及ぶ腫瘍があり, en block に切除した。前腹筋欠損部はテフロンパッチで修復した。

図7 症例2, 注腸透視

図8 症例2. 腹腔動脈造影：右胃大網動脈分枝の拡張, 蛇行, 血管増生 (↑印)。

切除標本肉眼所見：横行結腸, 肝, 腹壁筋, 脂肪組織が一塊に切除され, 中心には $12 \times 10 \times 3.5$ cm の腫瘍塊があった。断面で, 所々に小腸腸の形成が認められた。結腸粘膜に病的変化はなかった (図9)。

病理組織所見：血管周囲性に小円形細胞浸潤がみられ, 線維性組織の増生が著明であった。膿瘍内に, HE 染色, Grocott 染色ともに症例1と同様の染色性を有する放線菌塊を認めた (図10)。

術後一週間のセフェム系抗生剤の投与以外他の抗生剤の追加投与は行なわなかったが, 術後1年半の現在再発の徴なく健康である。

III. 考 察

放線菌類は菌糸や分生胞子を作り形態的には真菌に

図3 症例1. 切除標本断面：↑印は膿瘍を示す。

図9 症例2. 切除標本断面：↑印は小膿瘍を示す。

図4 症例1. 病理組織所見：上 HE 染色×200, 下 Grocott 染色×200, 明瞭な菌塊が認められる。

図10 症例2. 病理組織所見：上 HE 染色×40, 下 Grocott 染色×100, 明瞭な菌塊が認められる。

類似しているが、真菌より小さく、むしろ細菌に近い大きさであること(1 μ 前後)、原核細胞であること、抗細菌抗生剤に感受性であるが、抗真菌剤には感受性がないことなどの点から、細菌として放線菌目に属している。ヒトの病巣から検出されるものは *Actinomyces israeli* (以下 *A. israeli*) であり、偏性嫌気性、グラム陽性、非抗酸性菌である¹²⁾。病巣内や排出物中に特有の黄色顆粒を認める。これは密集した菌糸よりなる菌塊 (Sulfur granule, Druse) である。この菌塊の大きさは数10 μ であり、他の細菌や真菌などの菌塊ではみられない棍棒状構造 (club formation) をその周縁に有する。この構造が太陽のコロナにたとえられることから放線菌と呼ばれている。club はキチン質よりなるといわれているが、培地上の菌集落では club が形成されないことから菌塊周囲の組織反応に対する菌塊側の反応によって形成されると考えられている³⁾。中央部はグラム陽性の長い樹枝状分岐を示す菌糸が複雑に絡み合っている。菌塊の染色態度は図4、図10に示したように外層はエオジン好性、中心部はヘマトキシリン好性であり、Grocott 氏法によるメセナミン銀染色で外層、中心部とも黒染される。*A. israeli* は自然界からは分離されず、ヒトの口腔内 (歯石、扁桃腺窩) や腸管内に常在し、通常は病原性を示すことはないといわれている。

放線菌症は従来慣習的に真菌症として分類される傾向があるが、実際には前述の如く細菌によって生じる慢性化膿性肉芽腫性疾患である。Cope⁴⁾は発生部位別に1) 顔面頸部放線菌症2) 胸部放線菌症3) 腹部放線菌症の3型に分類し、部位別頻度は各々63%、15%、22%と報告している。腹部放線菌症の割合は60%以上とする報告⁵⁽⁶⁾もあるが、多くは20%前後である⁷⁽⁸⁾。

腹部放線菌症の発症機転としては、消化管粘膜が病的過程または外傷により損傷を受けた場合に、*A. israeli* が組織内に侵入し病原性を獲得すると考えられ、内因性感染症とされている。そして発病の為に他の嫌気性細菌との共棲が必要であるといわれている⁹⁾。虫垂炎、結腸憩室炎、胃・十二指腸潰瘍穿孔、胃切除後、結腸切除後、魚骨などの異物刺入等による局所の損傷に続発して発症するものと考えられる。ちなみに顔面部では抜歯が誘因となることが多い。腹部放線菌症の好発部位は回盲部であるが、虫垂炎との因果関係が強く示唆される。Putman¹⁰⁾は122例の腹部放線菌症のうち88例が急性虫垂炎に続発したと述べ、梶谷⁶⁾は43例中60%が右下腹部に発生し侵入門戸は虫垂

であるとしている。また Minsker¹¹⁾も腹部放線菌症343例中219例(64%)が回盲部に発生したと述べている。しかし小沢¹²⁾によると47例中横行結腸が20例(42.6%)と多く回盲部は11例(23.4%)であった。本稿2症例とも腫瘍は横行結腸に浸潤し他の腸管とは接していなかったこと、内因性感染症であることから侵入部位は横行結腸であると考えられた。しかし魚骨や憩室等の誘因となる所見はなく、粘膜も正常であった。

Grill は腹部放線菌症の臨床経過をI期：初発期、II期：腫瘍形成期、III期：瘻孔形成期の3期に分けているが¹³⁾、本2症例の如くII期においては悪性腫瘍との鑑別がしばしば問題となる。Harvey⁵⁾は検査所見として赤沈の亢進、軽度～中等度の貧血、中等度白血球増多が認められたとし、Cedermark¹⁴⁾は腹部放線菌症の臨床徴候として体重減少、発熱、赤沈の亢進、腫瘍の触知、瘻孔形成を挙げ、血小板増加(60×10⁴)が他の感染症との鑑別に診断価値があると述べた。本2症例とも血小板増加が認められたが、放線菌症との因果関係の有無は不明である。確定診断には、1) 膿汁内あるいは病巣組織中からの菌塊の証明、2) 培養での菌の検出のいずれかが必要である。瘻孔形成期に至り病巣から膿汁等の分泌物が得られる場合は、菌塊の証明も可能であるが、I期、II期ではその診断はきわめて困難である。症例1では超音波、CTの所見より腹壁発生のSarcomaを考えた。症例2では超音波、CT、注腸透視で原発は不明であるが、腹壁を含めた広範な浸潤を呈する悪性腫瘍を疑い、腹腔動脈造影で大網原発のSarcomaと診断した。本2症例でも明らかに画像診断を駆使しても有力な鑑別診断の手段とはならないのが現状である。Minsker¹¹⁾は腹部放線菌症の透視所見として鋸歯状変化、陰影欠損、圧排像、壁の硬化と蠕動の欠如を挙げいずれの場合も粘膜構造は保たれていると述べているが、大腸癌との鑑別は可能であっても、粘膜下腫瘍をはじめ周囲からの浸潤との鑑別は不可能であろう。また血管造影では、Olsson¹⁵⁾は腹部放線菌症に特異的な所見はなく、乏血性悪性腫瘍、クローン病、結核との鑑別が必要であると述べ、坪内¹⁶⁾は胃、横行結腸間に大網を介して1塊となった腫瘍に中結腸動脈の広狭不整、異常血管の増生、血管の蛇行などを認め悪性腫瘍を考えたとしている。Pollock¹⁷⁾はThin-needle Aspiration Biopsyを放線菌症3例に応用し、3例とも菌塊を証明した。我々も症例2で前後2回の超音波ガイド下吸引細胞診を行なったが、いずれもClass IIで、病理診断は炎症性肉芽組織であり菌

塊を証明することはできなかった。retrospective にみれば、症例 2 では膿瘍が小さく針先を膿瘍内に刺入することが困難であったことによるものと考えられる。一方症例 1 では膿瘍腔も大きく、もし術前に吸引細胞診が行なわれていたなら菌塊の証明も可能であったと考えられ悔まれる。腹部腫瘍の診断にあたって、放線菌症の存在を念頭におく必要があると考えられた。

放線菌症の治療は歴史的には X 線療法、ヨードカリ療法、thymol、ワクチン療法等が行なわれたこともあるが、いずれも満足のものではなかった。Herrell¹⁸⁾が 4 例の放線菌症患者（顔頸部 3 例、腹部 1 例）に対しはじめて Penicillin を応用した以来、その治療成績は飛躍的に改善されたといえよう。現在、放線菌症に有効な薬剤として、Penicillin, Erythromycin, Tetracyclin, Cephalosporin, Lincomycin, Sulfonamides 等が挙げられるが Penicillin が第 1 選択剤である¹⁹⁾。一方外科療法は切開、排膿、壊死組織掻爬切除、病巣切除等があり、Wangensteen²⁰⁾は壊死組織の切除により、嫌気性である放線菌の発育に最適な環境を取り除く必要があるとし、放線菌症における外科療法の重要性を主張した。一般的には Penicillin の長期大量投与と外科療法の併用が基本的治療法と考えられる⁵⁾¹⁰⁾¹¹⁾¹³⁾。Harvey⁵⁾は Penicillin G 1,000~2,000 万単位/日の点滴静注を 30~45 日間行なった後、病巣の広範切除を行い、更に術後 1 年~1 年半にわたり、200~500 万単位/日の Penicillin G の筋注ないし Penicillin V 500 万単位/日の経口投与を行い、Penicillin もしくは外科療法の単独療法では 50% 前後であった治癒率を 88% に向上させた。Putman¹⁰⁾も手術と Penicillin との併用で 95.8% の治癒率を得たと報告している。Penicillin の投与量と投与期間は諸家により一定していないが、病巣は結合組織が多く乏血性であるため薬剤の浸透性は悪く、長期大量投与により血中濃度を高くしなければならぬとされている⁵⁾。我々は 2 症例とも術前、術中を通し悪性腫瘍の診断で手術がなされたため、腹壁を含め浸潤病巣の広範切除を行なった。病理組織診断で放線菌症の診断を得た後も、病巣の完全剔出がなされたと考え、術後 1 週間のセフェム系抗生剤の投与以外に Penicillin 等の追加投与は行なわなかった。我々のように外科的切除のみで Penicillin の長期大量投与を行なわずとも治癒し得たとする報告例²¹⁾²²⁾もあり、病巣の完全剔出がなされた場合は、あえて Penicillin の長期大量投与は必要ないのかもしれない。本稿 2 症例とも術後 1 年半経過した現在も再発の徴候は認め

ていないが、今後も厳重に再発の有無を追跡したいと考えている。

IV. 結 語

術前 Sarcoma と診断し手術したところ、病理組織学的に放線菌症であった腹部放線菌症の 2 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

稿を終えるにあたり、病理組織学的所見について御教示いただいた本院病理部島山重春氏、立正佼成会附属病院病理部長三浦妙太先生に深謝いたします。なお本論文の要旨は第 46 回日本臨床外科医学会総会（東京・1984 年）において発表した。

文 献

- 1) 牛場大蔵、斎藤和久編：放線菌類。新細菌学入門、1：245—246、南山堂、東京、1982。
- 2) 吉野亀三郎編：放線菌類。最新医微生物学、4：174—178、文光堂、東京、1979。
- 3) 直江史郎、田中 昇、川上 浩：放線菌症 (Nocardia 症を含む) の病理と最近の話題。臨病理、20：319—322、1972。
- 4) Cope, V.Z.: Actinomycosis. 1st ed., 17, Oxford University Press, London, 1938.
- 5) Harvey, J.C., Cantrell, J.R., Fisher, A.M.: Actinomycosis: Its recognition and treatment. Ann. Int. Med., 46: 868—885, 1957.
- 6) 梶谷 鏝：塩田外科「クリニック」に入院診療せられたる放線状菌症 67 例に就て。日外会誌、42：539—576、1941。
- 7) Brown, J.R.: Human actinomycosis. A study of 181 subjects. Human Pathology, 4: 319—330, 1973.
- 8) 美甘義夫、福島孝吉：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。
- 9) Duncan, J.A.: Abdominal actinomycosis, changed concepts? Am. J. Surg., 110: 148—152, 1965.
- 10) Putman, H.C., Dockerty, M.B., Waugh, J.M.: Abdominal actinomycosis. An analysis of 122 cases. Surg., 28: 781—800, 1950.
- 11) Minsker, O.B., Moskovskaya, M.A.: Abdominal actinomycosis: Some aspects of pathogenesis, clinical manifestation and treatment. Mykosen, 22: 393—408, 1979.
- 12) 小沢 洋、綿引 元、中野 哲他：横行結腸放線菌症の 1 例。胃と腸、16：1147—1152、1981。
- 13) 穴沢雄作、湯浅晋治、石川洋三他：膣アクチノミコーゼの手術治験例。手術、19：140—147、1965。

- 14) Cedermark, B., Sundblad, R., Willems, J.S. : Suspected neoplasm of the liver with pulmonary metastases cured by surgery and penicillin. *Am. J. Surg.* 141 : 384—386, 1981.
- 15) Olsson, T. : Angiography in actinomycosis of the abdomen, report of 2 cases. *Am. J. Roentgenol Radium Ther. Nucl. Med.*, 122 : 278—280, 1974.
- 16) 坪内隆佳, 寺岡広昭, 藤永 裕他 : 腹部放線菌症の1手術治験例, 外科, 36 : 1515—1517, 1974.
- 17) Pollock, P.G., Meyers, D.S., Frable, W.J., et al. : Rapid diagnosis of actinomycosis by thin-needle aspiration biopsy. *Am. J. Clin. Pathol.*, 70 : 27—30, 1978.
- 18) Herrell, W.E. : The clinical use of penicillin. *J. A.M.A.*, 124 : 622—627, 1944.
- 19) Weinstein, L. : Chemotherapy of microbial diseases, *The Pharmacological Basis of Therapeutics*, Goodman, L.S. and Gilman, A., 5 : 1090—1200, Macmillan Publishing Co., Inc., New York, 1975.
- 20) Wangenstein, O.H. : The role of surgery in the treatment of actinomycosis. *Ann. Surg.*, 104 : 752—770, 1936.
- 21) 新美隆男, 河村英之, 浅野昌彦他 : 腹部放線菌症の1症例, 外科診療, 24 : 503—507, 1982.
- 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.

TWO CASES OF ABDOMINAL ACTINOMYCOSIS ORIGINALLY DIAGNOSED AS SARCOMA

Fumio ISHIZUKA, Kiichi TAKAHASHI, Takashi FUNADA, Hiroshi MASUDA and
Tetuya WATANABE

Department of Surgery, Itabashi Chuo General Hospital

Actinomycosis is chronic suppurative granulomatous disease caused by a *Actinomyces israeli*. *Actinomyces israeli* is an anaerobic, gram-positive bacteria that forms part of the normal flora of the human mouth and gastrointestinal tract. Cervicofacial, thoracic, and abdominal actinomycosis are the three most common forms of the disease. Since the lesions of actinomycosis are characterized by the presence of firm indurated masses, it is difficult to differentiate abdominal actinomycosis from malignant tumors.

Two cases of abdominal actinomycosis that were initially diagnosed as sarcoma are reported.

Case 1: A 64-year-old woman was admitted to our hospital, complaining of a mass (9 × 23 cm) in the umbilical region. A preoperative diagnosis of sarcoma of the abdominal wall was made by ultrasonography and CT.

Case 2: A 48-year-old man complained of a mass (10 × 12 cm) in the right upper quadrant. A preoperative diagnosis of sarcoma of the great omentum was made by ultrasonography, CT, barium enema and angiography.

In both cases a mass composed of abdominal wall, great omentum and transverse colon was resected en bloc. The cut surface of specimens showed abscesses and histologic examination showed "sulfur granules."

Both cases are expected to be cured by wide surgical excision of the involved tissues, without administration of penicillin.