症 例

広汎な大腸潰瘍性病変を示した腸型 Behçet 病の 1 例

岐阜大学第 1 外科（主任：広瀬光男助教授）

尾 関 豊 鬼 束 惇 義 林 勝 知

広汎な大腸潰瘍性病変を有する腸型 Behçet 病の 1 例を報告した。

症例は32歳，男性。約 1 年前に口腔内アフタ，虹彩毛様体炎，網膜脈絡膜炎をきたし，不全型 Behçet 病と診断された。1 カ月前より眼症状悪化し眼科入院中，右下腹部痛，下痢をきたし当科に転科した。右下腹部に腹膜刺激症状を認めたが，腹部 X 線上 free air, niveau および拡張腸管ガス像を認めないことから保存的に経過観察したところ，徐々に軽快した。発症 3 週後に行った注腸検査にて上行結腸から S 状結腸にかけて最大径 1.5 cm 以下の類円形な punched out 潰瘍を多数認めた。

左側結腸に潰瘍を有する腸型 Behçet 病を文献的に検索し，その特徴について述べた。

索引用語：腸型 Behçet 病，大腸潰瘍性病変，Inflammatory Bowel Disease

はじめに

腸型 Behçet 病は回盲部に好発し，大腸に散在性に潰瘍性病変の認められるものは約 6 % にすぎないとされている¹⁾。最近われわれは，広汎な大腸潰瘍性病変を有する腸型 Behçet 病の 1 例を経験したので，若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：32歳，男性。

主訴：腹痛，下痢。

家族歴：特記すべきことはない。

既往歴：16歳より時々意識消失発作があり，当院精神科にててんかんとして加療を受けている。

現病歴：昭和59年12月突然，右視力の低下をきたした。当院眼科入院精査の結果，虹彩毛様体炎，網膜脈絡膜炎および口腔内アフタを認め，不全型 Behçet 病と診断された。一時軽快し，通院加療していたが，昭和61年1月2日再び左視力の急激な低下をきたし同科に入院した。視力は徐々に回復し，1月29日当院口腔外科にて歯根嚢胞の摘出術を受けたところ，術後 38～40℃ の発熱が続き，2月3日より右下腹部痛，1日 10～20 回の下痢，食欲低下をきたし当科を紹介された。

当科入院時現症：体格・栄養中等度。神経 Behçet 病あるいはてんかんに伴う特異な性格を有し，了解が悪く，頑固であった。結膜には貧血，黄疸を認めないが，

視力は右 0.08，左 0.4 と低下していた。口腔内には直径 1cm 大のアフタ性潰瘍を 3 個認めた。腹部は平坦であるが，右側腹部から下腹部にかけて軽度の筋性防御，Blumberg 徴候を認め，圧痛は著明であった。右下肢の不全麻痺および左足関節炎を認め，神経 Behçet 病および関節 Behçet 病と考えられた。

入院時検査所見：著明な白血球増多，赤沈亢進を認め，CRP⁺ と高度な炎症所見を示した。そのほか，軽度の貧血，低蛋白血症などを認めた（Table 1）。

腹部単純 X 線所見：腸管ガス像は正常で，free air,

Table 1. Laboratory data on admission

RBC	356×10 ⁴ /mm ³	LAP	47 IU/l
Ht	32.1 %	γ-GTP	95 IU/l
Hb	10.5 g/dl	T. Chol	103 mg/dl
WBC	25,500/mm ³	TG	110 mg/dl
Platelet	33.5×10 ⁴ /mm ³	BUN	8.7 mg/dl
Na	138 mEq/l	Creatinine	0.9 mg/dl
K	3.0 mEq/l	Amylase	94 IU/l
Cl	98 mEq/l	CRP	6+
Ca	4.4 mEq/l	ESR	1* 80 mm
TP	5.7 g/dl		2* 135 mm
Alb	3.2 g/dl	CEA	1.96 ng/ml
T. Bil	0.4 mg/dl	HBsAg	(-)
D. Bil	0.2 mg/dl	Syphilis	(-)
ALP	203 IU/l	IgG	933.0 mg/dl
GOT	25 IU/l	IgA	463.4 mg/dl
GPT	39 IU/l	IgM	82.5 mg/dl
LDH	183 IU/l	Urinalysis	: n.p.
Ch-E	0.51 ΔpH	Feces : occult blood	(-)

昭和62年3月17日受付 62年7月1日採用

Fig. 1 Plain abdominal X-ray film.

Fig. 3 Double contrast study of the colon presenting multiple punched out ulcers of the right side colon.

Fig. 2 Double contrast study of the colon & terminal ileum showing no ulcer in the terminal ileum and cecum.

Fig. 4 Double contrast study of the colon indicating multiple ulcers of the transverse & sigmoid colon.

niveau および拡張腸管ガス像は認めなかった (Fig. 1).

腹部超音波検査にて膿瘍形成などの異常エコーを認めなかった。

以上より、急性虫垂炎も否定できなかったが、腸型 Behçet 病を強く疑い、腸管穿孔の可能性を考慮しつつ保存的に経過を観察した。抗生剤、止瀉剤の投与により、解熱し、腹痛、下痢も徐々に軽快した。白血球数 10,000/mm, ESR 1' 50mm, CRP3+ となった 2 月 21 日に注腸造影検査を施行した。

大腸 X 線所見：回腸末端および回盲弁には明らかな異常所見を認めなかった (Fig. 2)。上行結腸から横行結腸にかけて散在性に多数の潰瘍性病変を認め、その正面像は星芒状のものもあるがほとんどは円形ないし類円形で浅いわりに辺縁が鋭い punched out で、最も大きいもので直径 1.5cm と比較的小さかった (Fig. 3, 4)。同様な形態の潰瘍が S 状結腸にも 1 個みられた (Fig. 4, 6)。横行結腸脾弯曲から下行結腸にかけては微細なアフタ様びらんがびまん性に存在し (Fig. 5)、直腸 S 状部には軽度の伸展不良が認められた (Fig.

Fig. 5 Double contrast study of the colon showing diffuse aphthoid ulcers of the descending colon.

Fig. 6 Double contrast study of the colon & rectum indicating slight rigidity of the rectosigmoid colon.

4, 6)。直腸にも微細な粘膜病変の存在が疑われたが、詳細は明らかでなかった (Fig. 6)。

腸型 Behçet 病と診断し、引き続き大腸内視鏡検査を行う予定であったが、患者が拒否したため施行できず、また、本人の強い希望により退院した。その後外来にて経過観察しているが、患者の了解が得られないため以降の注腸および大腸内視鏡検査は施行できていない。

考 察

腸型 Behçet 病の潰瘍性病変は全消化管に発生しうるが、回盲部近傍に好発する傾向が強く、大腸に広汎にみられることは少ない。そこで、回盲部近傍以外の大腸潰瘍性病変の特徴を明らかにするため左側結腸に潰瘍性病変を有する腸型 Behçet 病の本邦報告例を検索したところ自験例を含め 10 例を認めた²⁾⁻⁹⁾ (Table 2)。年齢は 22~41 歳、平均 33 歳。性別は男 6 例女 4 例。完全型 2 例、不全型 6 例、疑わしい型および可能性のある型それぞれ 1 例で、不全型が多い。潰瘍の存在部位に特徴的な場所はなく、多発性 8 例、単発性 2 例で多発例が多い。潰瘍の大きさは 1 例を除き、すべて 2~3

Table 2. Ulceration of the left side colon in Behçet's disease from Japanese literature

reported case	age	sex	type	site	number	size	shape	perforation	resection
1. Wakabayashi et al. ²⁾	22	F	incomplete	transverse ~sigmoid	multiple	0.5~1 cm	n.p. except perforated part	+	+
2. Kawasaki et al. ³⁾	31	M	possible	transverse	solitary	ca. 2 cm*	punched out	+	+
3. Ohta et al. ⁴⁾	41	M	complete	transverse ~descending	multiple	ca. 2 cm*	n.p. except perforated part	+	+
4. Baba et al. ⁵⁾	28	M	complete	transverse ~sigmoid	multiple	<2 cm**	ring-like	-	-
5. Namiki et al. ⁶⁾	38	M	incomplete	sigmoid	solitary	0.5 cm**	n.p. except perforated part**	+	+
6. Takada ⁷⁾	35	F	incomplete	transverse ~sigmoid	multiple	<2~3 cm**	punched out	-	-
7. Takada ⁷⁾	42	F	doubtful	sigmoid	multiple	small	punched out	-	-
8. Katayama et al. ⁸⁾	41	M	incomplete	transverse ~descending	multiple	<1 cm	round	-	-
9. Yagita et al. ⁹⁾	22	F	incomplete	transverse & sigmoid	multiple	8×3.5 cm	irregular	-	+
10. our case	32	M	incomplete	transverse ~sigmoid	multiple	<1.5 cm	punched out	-	-

M : male, F : female, n.p. : nothing in particular, * : thumb's head, ** : supposed from reported pictures

cm 以下と比較的小さく、その性状はほぼ円形の punched out 潰瘍がほとんどである。左側結腸潰瘍の穿孔例は 4 例で、左側結腸潰瘍に対し切除術が施行されたのは 5 例である。これら左側結腸に潰瘍性病変を有する腸型 Behçet 病と腸型 Behçet 病全体の集計例¹⁰⁾¹¹⁾を比較すると年齢・性、病型に差はなく、多発病変の頻度もほぼ同じである。寺田ら¹²⁾は腸型 Behçet 病を小腸型、小腸・結腸型、結腸型に分類し検討している。これによると小腸の潰瘍性病変と結腸の潰瘍性病変では大きさに差が認められ、結腸病変は大きなものが多く、母指頭大を約 2cm とすると 2cm 以上のものが大多数を占めているという。しかし、今回の検討では左側結腸の潰瘍性病変は 2cm 以下の比較的小さいものがほとんどで、結腸病変の中でも右側結腸とくに回盲部の潰瘍性病変との間に大きさの相違があるものと考えられた。また、回盲部の潰瘍は類円形の punched out 潰瘍以外に不整形の形態を示すことがしばしばあるのに対し¹³⁾、左側結腸の潰瘍ではほとんどが類円形の punched out 潰瘍であった。山筋ら¹⁴⁾は Behçet 病にみられた食道潰瘍の X 線像を報告しているが、自験例の結腸潰瘍に類似しており、本来、腸型 Behçet 病の腸管潰瘍は発生部位に関係なく類円形 punched out であり、そのうち難治性のものが不整形に変化していくのかもしれない。山筋ら¹⁴⁾の食道潰瘍は約 3 週間で保存的に治癒しており、結腸潰瘍に関しても治癒化が早く、難治性のものでは punched out を示さないとする報告があり、前述の推論を支持するものである¹⁵⁾。

腸型 Behçet 病と鑑別を要する疾患としていわゆる炎症性腸疾患 (inflammatory bowel disease, IBD と略) があり、とくに Crohn 病との鑑別が困難とされている。橋本ら¹⁶⁾は Behçet 病および Crohn 病それぞれの診断基準により 99% 識別可能と報告しているが、IBD に Behçet 病の主症状がみられることはまれならずあり、IBD の多い欧米ではとくに鑑別が難しく、IBD の存在する場合には Behçet 病の診断は不可能とするものもある¹⁷⁾。本邦の診断基準をみると、Behçet 病は主症状が揃っていさえすれば診断可能で、そのうち腸管に潰瘍が証明されたものが腸型 Behçet 病であり、Crohn 病は除外診断が必要で、Crohn 病の所見が揃っていても他の疾患があれば Crohn 病とは診断できないことになっている。したがって、診断基準のみからは Behçet 病と Crohn 病の合併はありえないことになる。ところが、Behçet 病の colitis として報告してある欧米の論文の中には、縦走潰瘍あるいは肉芽腫といった Crohn 病に特徴的な所見の記載がしばしばみられ、筆者が判断すると Behçet 病と Crohn 病の合併と思わ

Table 3. Behçet's disease with intestinal ulceration

1) intestinal Behçet's disease
2) Behçet's disease & IBD
a) intestinal Behçet's disease (+)
b) intestinal Behçet's disease (-)
3) IBD with symptoms of Behçet's disease

れるものが少なからず存在し、また、両者の合併例としての報告もみられる¹⁷⁾¹⁸⁾。Behçet 病に腸管潰瘍が証明されたとき一般に腸型 Behçet 病と診断されるが、厳密には Table 3 のように 4 通りの病型が考えられる。本邦では腸管の炎症性潰瘍性病変の鑑別に肉眼所見が最も重要視されており、それに臨床症状および組織所見を加味して診断するのが一般的である。このようにして Behçet 病と Crohn 病の合併例と診断された症例が本邦で 2 例報告されており、1 例は Behçet 病と Crohn 病の合併例で腸管病変は Behçet 病とは関係のないもの¹⁹⁾、もう 1 例は腸型 Behçet 病と Crohn 病の合併例で腸管病変も Behçet 病と Crohn 病が併存しているとするもの⁹⁾である。後者は Table 2 の症例 9 に相当するが、この症例の潰瘍の大きさおよび性状は今回検討した左側結腸の Behçet 病潰瘍の大きさ、性状と異なっており、口側に典型的な Crohn 病の潰瘍性病変の存在することおよび術後症例であること²⁰⁾と合わせ、この症例の腸管病変全体を Crohn 病と判断するのが妥当と考えられた。

おわりに

広汎な大腸潰瘍性病変を有する腸型 Behçet 病の 1 例を報告し、左側結腸にみられる腸型 Behçet 病の潰瘍性病変の特徴について文献的考察を加えた。

第 1 外科広瀬光男助教授の御校閲に深謝します。また、本論文の作成にあたり貴重な助言を戴いた本院放射線科鈴木雅雄先生に深謝します。

文 献

- 1) 馬場正三：腸型ベーチェット病，総合臨 32：1989—1993，1983
- 2) 若林陽夫，久保田信孝，田中猛夫：結腸および回腸に多発性穿孔を来した Behçet 症候群の 1 治験例，外科治療 14：732—736，1966
- 3) 川崎久徳，林 徹，田林忠綱他：Gastrointestinal Behçet 病とそのステロイドによる穿孔，治療 51：825—830，1969
- 4) 太田八重子，倉光秀麿，佐野謙太郎：大腸に多発性穿孔を起こした Gastrointestinal Behçet 症候群の 1 例，東京女医大誌 40：472—477，1970
- 5) 馬場正三，丸田守人，安藤幸史他：Intestinal Behçet の 4 症例，胃と腸 7：1649—1657，1972
- 6) 並木正義，関谷千尋，原田一道：北海道における腸型ベーチェット病その後—新たな症例と地域検診の結果—，特発性腸管障害調査研究班，昭和52年度業績集，1978，123—130
- 7) 高田好彦：Intestinal Behçet の臨床的および病理組織学的研究—7 症例の分析。特に潰瘍の発生機序に関する考察—，北里医 8：363—379，1978
- 8) 片山揚誠，竹内 広，栗林宣雄他：Intestinal Behçet 病の 1 例—とくに組織学的所見について—，医療 32：1011—1014，1978
- 9) 八木田旭邦，樋口公明，椎名栄一他：Behçet 病にクローン病が合併したと考えられる症例，胃と腸 14：939—945，1979
- 10) 白鳥常男，稻次直樹：本邦における腸型 Behçet 病手術症例66例の文献的考察，外科治療 38：129—139，1978
- 11) 馬場正三：腸型 Behçet 病の臨床，胃と腸 14：885—892，1979
- 12) 寺田紘一，近藤慶二，村上 仁：本邦報告例からみた腸型ベーチェット切除75例の臨床，外科 45：1421—1429，1983
- 13) 坂本清人，堀之内幸士，八尾恒良他：Intestinal Behçet の 3 症例と本邦報告例の分析，日消誌 72：1032—1046，1975
- 14) 山筋 忠，政 信太郎，橋本修治他：Behçet 病にみられた食道，回腸終末部潰瘍の X 線像，臨放線 26：517—520，1981
- 15) 森 伸一：腸型ベーチェット病における臨床像の変貌と免疫組織学的研究，リウマチ 25：173—182，1985
- 16) 橋本番史，柳田たみ子，荻野鉄人他：診断基準の問題点—とくに診断の感度と特異性について—，厚生省特定疾患・ベーチェット病調査研究班，昭和56年度研究業績集，1982，p41—45
- 17) Smith GH, Kime LR, Pitcher JL: The colitis of Behçet's disease: A separate entity? Colonoscopic findings and literature review. Dig Dis 18: 987—1000, 1973
- 18) Yim CW, White RH: Behçet's syndrome in a family with inflammatory bowel disease. Arch Intern Med 145: 1047—1050, 1985
- 19) 舟山 尚，中野新一，蕭 光麟他：ベーチェット病を伴った肉芽腫性大腸炎，外科治療 20：893—896，1978
- 20) 八尾恒良，洲上忠彦：クローン病の X 線診断に関する考察。厚生省特定疾患クローン病調査研究班，昭和52年度業績集，1977，p99—102

INTESTINAL BEHÇET'S DISEASE PRESENTING DIFFUSE COLONIC ULCERATION
—REPORT OF A CASE—

Yutaka OZEKI, Atsuyoshi ONITSUKA and Masatomo HAYASHI

First Department of Surgery, Gifu University School of Medicine, Gifu, Japan

A case of intestinal Behçet's disease which presented diffuse colonic ulceration is reported.

A 32-year-old man with a one-year history of Behçet's disease was admitted to Gifu University Hospital because of recurrent eye symptoms. During his stay in the Department of Ophthalmology, he complained of right lower abdominal pain and diarrhea. Physical examination showed signs of peritoneal irritation, and laboratory data revealed findings of marked inflammation. However, since there was no sign of intestinal perforation or obstruction on abdominal X-ray film, conservative treatment was employed. Thereafter, his hospital course was uneventful. Barium enema performed three weeks later showed multiple ulcerative lesions of almost the entire colon. The ulcers were oval, punched out and less than 1.5 cm in diameter, characteristic of intestinal Behçet's disease.