症 例

Crohn 病の経過観察中に異時性異所性に発生した 壊疽性膿皮症の 1 例

社会保険中央総合病院外科

斎 浦 明 夫 柴 崎 正 幸 柴 山 和 夫 万 代 恭 嗣

壊疽性膿皮症は炎症性腸疾患患者などに発生する原因不明の潰瘍性皮膚疾患であり、頻度は稀である。今回われわれは Crohn 病の経過観察中に異時性異所性に発生した壊疽性膿皮症の 1 例を経験したので、報告する。患者は 22 歳男性、Crohn 病が増悪し、コントロール目的に内科入院中、左前脛骨部に潰瘍性皮膚病変を認めた。切開排膿、抗菌薬投与、デブリドマンを行うも、増悪したため外科転科となった。膿の結菌培養結果は陰性であり、肉眼所見と併せて壊疽性膿皮症と診断し、ステロイドの外用、内服を開始した。炎症所見、皮膚病変とも顕著に改善し約 2 カ月で退院した。その後側頭部に再発したが、ステロイド増量により軽快した。近年の Crohn 病の増加とともに壊疽性膿皮症も増えることが予想され、皮膚難治性潰瘍病変に遭遇した際には常に念頭に置くとともに、ステロイド投与を中心とした内科的治療を優先し、外科的治療は必要最小限にとどめるべきであると考えられた。

索引用語：壊疽性膿皮症，Crohn 病

はじめに

壊疽性膿皮症 (pyoderma gangrenosum, 以下 PG) は、炎症性腸疾患患者などに発生する原因不明の潰瘍性皮膚疾患であり、頻度は比較的稀である。なかでも本邦においては、Crohn 病 (以下 CD) に合併した PG の報告例は少ない¹⁾。しかし近年 CD は増加傾向にあり、これらの合併病変に遭遇する機会も増加すると思われる。今回われわれは Crohn 病の経過観察中に異時性異所性に発生した壊疽性膿皮症の 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：22 歳男性。

主訴：左下腿潰瘍。

既往歴：特になし。

現病歴：1992 年 11 月、他院で穿孔性腹膜炎の診断で救急手術を施行され回腸瘻が造設された。その後大腸内視鏡所見で CD の診断を受け、1993 年 3 月より当院内科で経過観察していた。1994 年 10 月、腋窩皮下腫瘤を主訴に当科を初診し、切開排膿にて軽快した。同年 12 月、Crohn 病が増悪したため、加療目的で内科入院

中であった。入院後しばらくして左側脛骨部に有痛性潰瘍性病変を認め、当科で切開排膿し、抗菌薬投与を行った。しかし軽快傾向がみられず 1995 年 1 月 4 日外科転科となった。

外科転科時検査所見：身長 169 cm, 体重 56 kg, 腹部に前回の手術創あり。白血球増多, CRP 上昇を認めるが、下腿の膿汁培養検査は陰性であった (Table 1)。

局所所見：左前脛骨部に強い疼痛を伴う、小水疱やそれらが癒合した噴火上潰瘍が多発しており、全体と

Table 1 入院時検査所見

血算		BUN	12 mg/dl
WBC	12,600 / μ l	Cre	0.7 mg/dl
Hb	13.3 g/dl	CRP	8.9 mg/dl
Plt	49.2×10^4 / μ l	凝固系	
生化学		PT	76 %
T.P	7.8 g/dl	aPTT	32.5 sec
Alb	3.6 g/dl	Fibrinogen	758 mg/dl
GOT	16 IU/L	血沈	
GTP	28 IU/L	30分	40 mm
ALP	362 IU/L	60分	87 mm
LDH	286 IU/L	膿汁真菌細菌培養検査	
CPK	315 IU/L		陰性
T.Cahol	117 mg/dl		

1997 年 12 月 2 日受付 1998 年 3 月 25 日採用

して径15×10cmの皮膚潰瘍面を形成していた (Fig. 1). 潰瘍辺縁は青紫色を呈し、堤防状で境界明瞭であった。デブリドマンを数回行ったが、潰瘍病変はむしろ拡大傾向を示した (Fig. 2). 2度の膿汁細菌培養検査で陰性であり形態、基礎疾患からPGと診断した。

病理組織所見：皮膚から皮下組織にかけ壊死、膿瘍を認めた (Fig. 3). 特に汗腺を中心に炎症細胞浸潤が著明であるものの、肉芽腫様変化は認められなかった。特徴的所見なく、壊疽性膿皮症として矛盾しない所見であった。

治療経過：病理組織所見を得たのち、ただちにステロイドの内服および外用を開始した (Fig. 4). 血液検査で炎症所見も著明に改善し、約1ヵ月後の肉眼所見で潰瘍の周堤も低くなり、治療開始後約3ヵ月でやや瘢痕を残したものの治癒し退院となった。しかし、4月に右側頭部、7月には左外顆に有痛性皮下腫瘍を再発した。これらの再発については、はじめから壊疽性膿皮症を疑い、切開排膿は施行せずステロイドを20mgと増量することにて軽快した (Fig. 5).

考 察

壊疽性膿皮症は Brunsting²⁾によって1930年に初めて報告された原因不明の難治性潰瘍性皮膚疾患であ

Fig. 2 数回デブリドマンを行った後の肉眼像

Fig. 1 左前脛骨部の潰瘍性皮膚病変の肉眼像

Fig. 3 病理組織像：(H-E 染色)

Fig. 4 下腿に発生したPGの治療経過

Fig. 5 ステロイド投与後の肉眼像

る。慢性関節リウマチ、炎症性腸疾患、大動脈炎症候群といった全身疾患に伴って起こることが多く、何らかの免疫異常が原因と推測されている。初期は小さい皮下膿瘍を形成するのみである。その後自覚し、難治性潰瘍となる。切開排膿、デプリドマンといった外科処置は効果が少なく、ステロイド投与を中心とした内科的治療が中心となるので初期診断が重要である。炎症性腸疾患を合併する率が高く、Powell ら³⁾は PG の

Table 2 Crohn 病における壊疽性膿皮症の発生頻度

報告者	報告年	症例数	PG	発生頻度
Greenstein ⁶⁾	1976年	213	2	1.0%
Rankin ⁷⁾	1979年	569	17	2.9%
Libin ⁸⁾	1982年	1,010	14	1.3%
Hickman ⁹⁾	1982年	498	6	1.2%
当院	1996年	642	4	0.6%

36%に炎症性腸疾患を、そして Crohn 病は全体の16%に合併したと報告している。しかし、わが国では潰瘍性大腸炎に合併する PG は数多く報告されているが^{4),5)}、CD に合併する PG の頻度は0.6%とまだまだ稀な併存病変と考えられる (Table 2)。どの部位の皮膚に発症してもおかしくないが、報告例¹⁰⁾では下腿が最も多く、その率は68~75%である。頭頸部は比較的少なく、しかも頭頸部に発生した PG は本症例のように下腿にも合併している場合が多い。Snyder ら¹¹⁾は6例の頭頸部の PG を報告しているが、その半数が下腿に PG の合併を認めている。逆に下腿の PG はこの部に限局することが多く、他の部位に PG を合併する率は27%と低いようである。

診断は基礎疾患の存在と皮膚病変の形態から行われる。すなわち、小膿瘍の形成に次いで、周囲が隆起した青紫色の難治性潰瘍病変となりうる典型的経過をとれば、臨床診断を下しうる。その際、他の皮膚疾患を除外することが大切である。また PG の膿は無菌性であり、細菌や真菌などが検出されるのは、二次感染をきたしたときのみである。本症例でも細菌培養検査はすべて陰性であった。経過の後半で本症例の側頭部に発生した小膿瘍は潰瘍化する前に疑診し、膿瘍穿刺により無菌性であることを確認し PG と診断した。

治療法はステロイドの全身および局所投与が中心となる。無効例に対しては免疫抑制剤が投与されることもある。炎症性腸疾患において原発腸病変の切除が必要かどうかは、議論の分かれるところである。コントロール不良の潰瘍性大腸炎に対し腸切除を行い PG が軽快した¹²⁾との報告があるが、CD では報告例が少なく結論は出ていない。一方、PG についても切開排膿、デプリドマンといった外科的処置が必要となることは少なく、今回の症例でも診断確定前に頻回に行ったデプリドマンは全く無効であった。PG は先行する外傷歴のあることが多く、本症例でも下腿を打撲した後に増悪していた。針反応が陽性のことが多いとの報告もあり、外科的処置は症状を増悪させる可能性も考えら

れ、最小限にとどめるべきであると思われる。

PG の病勢は CD の活動性と平行するといわれるが、本症例でも PG の発症前後に CD の悪化のため入院を繰り返しており、何らかの関連性があると思われる。CD は本邦での症例登録数が10,000例を越え年々増加している疾患である¹³⁾。若年発生が多く予後も比較的良好ことから、今後 PG も増加するものと思われる本症に対する注意が喚起されるべきである。

文 献

- 1) 原田玲子：Crohn 病に伴った壊疽性膿皮症。消内視鏡 7：1702—1703, 1995
- 2) Brunsting LA, Goeckerman WH, O'Leary PA：Pyoderma gangrenosum：Clinical and experimental observations on five cases occurring in adults. Arch Derm Syph 22：655—680, 1930
- 3) Powell FC, Schroeter AL, Su WP：Pyoderma gangrenosum：A review of 86 patients. Q-J-Med 55：173—186, 1985
- 4) 碓 優子, 内田博子, 芹川宏二他：潰瘍性大腸炎を併発した壊疽性膿皮症の 1 例。皮膚臨床 32：499—503, 1990
- 5) 安野洋一, 前田基彰：潰瘍性大腸炎を合併した壊疽性膿皮症の 1 例。臨床 30：293—299, 1976
- 6) Greenstein AJ, Janwits HD, Sachar DB：The extra-intestinal complications of Crohn's Disease and ulcerative colitis：A study of 700 patients. Medicine 55：401—412, 1976
- 7) Rankin GB, Watts HD, Melnyk CS：National Cooperative Crohn's Disease Study；extraintestinal manifestations and perianal complications. Gastroenterology 77：914—920, 1970
- 8) Libin MR, Greenstein A, Bauer JJ：Pyoderma gangrenosum in Crohn's disease. Mt-Sinai J Med 50：452—456, 1983
- 9) Hickman JG：Pyoderma gangrenosum. Clin Dermatol 1：102—113, 1983
- 10) Levitt MD, Ritchie JK, Lennard-Jones JE, et al：Pyoderma gangrenosum in inflammatory bowel disease. Br J Surg 78：676—678, 1991
- 11) Snyder RA：Pyoderma gangrenosum involving the head and neck. Arch Dermatol 122：296—302, 1986
- 12) 山内 毅, 杉田 昭, 山崎安信他：壊疽性膿皮症を合併した潰瘍性大腸炎の 7 例。日消病会誌 92：1961—1965, 1995
- 13) 武藤徹一郎：厚生省特定疾患難治性腸管障害調査研究班, 平成 4 年度業績集, 134—137, 1992

METACHRONOUS AND ECTOPIC OCCURRENCE OF PYODERMA GANGRENOSUM IN A PATIENT UNDER MEDICAL OBSERVATION FOR CROHN'S DISEASE

Akio SAIURA, Masayuki SHIBAZAKI, Kazuo SHIBAYAMA and Yasutsugu BANDAI

Department of Surgery, Shakai-Hoken Chuo General Hospital

Pyoderma gangrenosum is an ulcerative dermal disorder of unknown origin that occurs in patients with inflammatory diseases of the intestine in a low frequency. This time we experienced a case of metachronous and ectopic occurrence of pyoderma gangrenosum in a patient under medical observation for Crohn's disease.

A 22-year-old man who was staying at the internal medicine in our hospital for the purpose of controlling aggravated Crohn's disease was found having an ulcerative dermal lesion in the left anterior tibial region. In spite of incision for drainage, administration of antibiotics, and debridement, the lesion became worse so that the patient was transferred to the department. Based on negative results in biological culture of pus and macroscopic findings, the diagnosis of pyoderma gangrenosum was made. External and internal uses of steroids were started. Remarkable remissions in inflammatory findings and dermal lesion were obtained and the patient was discharged from the hospital about 2 months after the treatment. Thereafter, a recurrence to the temporal region occurred, but it was relieved by increasing the dose of steroids.

It is inferred that pyoderma gangrenosum will increase with a recent increase in Crohn's disease. When we encounter intractable dermal ulcerative lesion, a possibility of the disease must be kept usually in mind, and medical treatment including steroids should be preceded to surgery to minimize the surgical stress.