症 例

Behçet 病に伴う腹部大動脈瘤および胃癌に対し 2 期的手術を施行した 1 例

関西医科大学付属洛西ニュータウン病院外科, 関西医科大学外科*

中 本 博 之 箕 浦 俊 之 小 田 道 夫 今 村 敦*

症例は51歳の男性。30歳より Behçet 病にて加療中で、平成15年 8 月上部消化管内視鏡検査にて肉眼型 2 型胃癌と診断された。さらに CT 検査にて最大径 5 cm の腎動脈下腹部大動脈瘤を認めたため 9 月26日腹部大動脈瘤に対し人工血管置換術を、10月10日胃癌に対し幽門側胃切除を施行した。術後経過は概ね良好で、胃癌の術後40日目に退院となったが、約 1 年 1 カ月後多発性骨転移から DIC となり脳出血により死亡した。本症例は血管 Behçet としては典型的である。しかし、Behçet 病と消化管悪性腫瘍との合併は極めて稀で、本邦では本症例も含めて12例のみであった。今回の症例は 2 期的手術を選択し良好な術後経過を得たが、今後は個々の症例に応じ、1 期的手術か 2 期的手術かを厳重に検討して決定すべきであると思われた。

索引用語：Behçet 病，腹部大動脈瘤，胃癌

緒 言

Behçet 病は慢性遷延性経過をたどる全身性炎症性疾患であり、口腔粘膜の再発性アフタ性潰瘍、外陰部潰瘍、眼病変および皮膚病変を主訴とするが、この他、関節、血管系、腸管、中枢神経など全身に病変を生じる。しかし、Behçet 病と消化管悪性腫瘍の合併は極めて稀である。今回、われわれは腹部大動脈瘤を伴う血管 Behçet に胃癌を合併した症例を経験したので報告する。

症 例

患者：51歳，男性。

主訴：特になし。

既往歴：30歳より Behçet 病にて加療。32歳より Behçet 病によるブドウ膜炎にて全盲となる。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成15年 5 月 2 日に受けた胃集団検診にて異常を指摘され、8 月21日上部消化管内視鏡検査を行ったところ、胃体中部から前庭部にいたる巨大な隆起性病変を認めた。同部の生検から中分化型管状腺癌が検出されたため、肉眼型 2 型胃癌と診断し 9 月 8 日手

術目的にて入院となった。

本症例は Behçet 病の主症状の内、口腔粘膜の再発性アフタ性潰瘍、眼症状(網膜ぶどう膜炎)、外陰部潰瘍の 3 症状が出現しており、平成15年 4 月より当院内科においてコルヒチン 1 日 1 錠投与にて経過観察されていた。

入院時現症：身長175cm，体重60kg，体温37.0℃，血圧128/80mmHg，脈拍105回/分，舌および陰嚢に潰瘍を認めた。

入院時検査所見：白血球数 12,400/ul，CRP 5.6mg/dl と炎症反応がみられ，腫瘍マーカー CA19-9 が287 U/ml と著明な上昇を呈した。

上部消化管造影検査：立位充満像および二重造影にて，胃体中部から前庭部におよぶ巨大な隆起性病変を認めた(図1)。

上部消化管内視鏡検査：胃体中部大彎側に易出血性の肉眼型 2 型の巨大腫瘍を認めた。

CT 検査：胃内腔に突出する隆起性病変，胃周囲リンパ節の腫脹および，最大径 5 cm の腎動脈下腹部大動脈瘤が発見された(図2)。

3D-CT 検査：腎動脈下腹部大動脈の 2 カ所に，嚢状の突出を認めた(図3)。

入院後，腰部痛を訴え，CT 検査にて腹部大動脈瘤が発見されたため，破裂の危険を考え平成15年 9 月26日

2005年 8 月23日受付 2005年12月 2 日採用

〈所属施設住所〉

〒610-1142 京都市西京区大枝東新林町 3-6

図1 上部消化管造影検査：立位充満像では、胃体下部から前庭部にかけて巨大な隆起性病変が認められる。

腹部大動脈瘤に対し人工血管置換術を行った後、10月10日胃癌に対し幽門側胃切除を行った。

手術所見：腹部大動脈瘤に対する手術では、後腹膜到達法にて腹部大動脈に到達、Y graft (Woven Double Velour Vascular Graft D: 14×7 mm) 中枢側は腎動脈直下にて、脚部をそれぞれ総腸骨動脈に端々吻合した後、中枢側の吻合部を人工血管残布で被覆した。胃癌に対する手術では、上腹部正中切開にて開腹、腹水は認めず腫瘍の漿膜浸潤はなかったが、胃周囲のリンパ節が腫大しており、特にリンパ節 No. 5 は鶏卵大まで腫大していた。腸管 Behçet を思わせる所見はなかった。また、人工血管置換部分に異常は認めなかった。H0P0T2N2 (Stage IIIA) と診断し幽門側胃切除、2 群リンパ節郭清術を施行した。切除標本にて 8×6.5 cm の巨大な隆起性病変を認めた (図 4)。

病理所見：胃体中部から前庭部におよぶ病変は肉眼型 2 型の進行癌で、組織学的には tub2~por, INFγ, ss, PM(-), DM(-), pN1 (12/14), pN2 (5/13) であり、stage IIIA であった (図 5)。動脈瘤の瘤壁は、外弾性板での中膜の解離があり、解離面でのムコイド様物質の沈着と中膜の弾性繊維の減少およびプラズマ球、リンパ球の炎症性細胞浸潤がみられた。

術後経過は概ね良好で、腫瘍マーカー CA19-9 も 35 U/ml まで低下し胃癌の術後 40 日目に退院となった。しかし、約 10 カ月後に多発性骨転移をきたし、約 1 年

図2 腹部 CT 検査：A) 胃内腔に突出する巨大な隆起性病変を認める (矢印)。B) 最大径約 5 cm の腹部大動脈瘤を認める (矢印)。

$\frac{A}{B}$

1 カ月後 DIC となり脳出血により永眠された。

考 察

Behçet 病は 1937 年トルコの皮膚科医 Behçet が再発性の口腔内アフタ性潰瘍、外陰部有痛性潰瘍、ぶどう膜炎を三主徴とする疾患を報告したことに始まる。現在では口腔粘膜の再発性アフタ性潰瘍、皮膚症状、眼症状、外陰部潰瘍の 4 主症状を中心とする炎症症状の再燃性、遷延経過をとる原因不明の全身炎症性疾患として認知されている¹⁾。本邦においては、本症を上記 4 主症状を示す完全型とそうでない不完全型に分類している。また、特殊病型として、腸管の潰瘍性病変を示す腸管 Behçet、大小の動静脈病変をきたす血管 Behçet、脳幹、小脳、大脳白質の病変を主体とする神経 Behçet の 3 型を定義している²⁾。

一般的に血管 Behçet は Behçet 病全体の 10~20% といわれ、多発性で大小あらゆる動静脈を侵す。なかでも動脈瘤は手術をしても再発の危険が高く、動脈瘤の破裂は主な死因の 1 つである³⁾。また、外科的治療に

図3 3D-CT検査：腎動脈下腹部大動脈に大小2カ所の囊状の突出を認める（矢印）。

図4 切除標本：胃体下部から前庭部にかけて8×6.5 cmのBorrmann 2型進行胃癌であった。

において最大の問題点は吻合部動脈瘤である⁴⁾。小池ら⁶⁾の文献的考察によると22.5%の発生率があったというが、実際の発生率ももっと高率であろうと述べている。

本症例は腹部大動脈の腎動脈下に発生した直径約5 cmの動脈瘤であり、不整形、囊状を呈しており、血管Behçetとしては典型的である。しかし、Behçet病と消化管悪性腫瘍の合併は極めて稀で、本邦では胃癌との合併が本症例を含めて7例であり、食道癌が1例、大腸癌が4例のみであった^{6)~16)}。血管Behçetによる動脈瘤に消化管癌を合併した症例の報告は、医学中央雑誌（1983~2005）でわれわれが調べたかぎりでは、本邦初である。

膠原病における悪性腫瘍の発生率は、多発性筋炎、

図5 病理組織検査：中分化型管状腺癌を中心とする腫瘍細胞が認められる（HE染色×200）。

皮膚筋炎および混合性結合組織病で増加、全身性エリテマトーデス、慢性関節リウマチで軽度の増加を示すが、Behçet病ではそのような報告はない。Behçet病における悪性腫瘍の発生は、多くの場合、免疫抑制剤の投与が関係しているといわれているが詳細は不明である¹⁷⁾。

消化器癌合併腹部大動脈瘤手術は、一般的に1期的手術は人工血管感染の危険性があるため2期的手術が原則とされてきたが、直接成績および長期生存率で差を認めず、可能な症例では1期的手術も考慮すべきであるとされている。しかし、1期的手術の禁忌としては、全身状態不良で耐術困難な症例、動脈瘤破裂例、出血、閉塞あるいは穿孔を伴った消化管悪性腫瘍症例があげられ、2期的手術が選択されている¹⁸⁾¹⁹⁾。

現在、基礎疾患に起因する大動脈瘤に合併した消化管癌に対する1期的手術の報告はない。今回の症例では、前述の血管Behçetによる動脈瘤における術後合併症率の高さを考慮し、2期的手術を行い良好な術後経過を得た。今後は個々の症例に応じ、1期的手術か2期的手術かを厳重に検討して決定すべきであると思われる。

おわりに

極めて稀なBehçet病に伴う腹部大動脈瘤に合併した胃癌の症例を経験したため報告した。

本論文の要旨は、第66回日本臨床外科学会において発表した。

文 献

- 1) 森山一郎、木下芳一：腸管ペーチェット病。臨と研 81：1443—1449, 2004

- 2) 広畑俊成：ペーチェット病。臨と研 81：280—286, 2004
- 3) 岡本宏之, 佐藤 紀：血管ペーチェット。Angiol Front 3：209—213, 2004
- 4) Tuzun H, Besirli K, Sayin A, et al: Management of aneurysms in Behçet's syndrome: analysis of 24 patients. Surgery 121: 150—160, 1997
- 5) 小池茂文, 松本興治, 小久保光治他：Behçet 病の合併した腹部大動脈瘤術後に発生した大動脈十二指腸瘻の 1 例と本邦報告 95 例の Behçet 病動脈瘤について。日外会誌 89：945—950, 1988
- 6) 赤城一郎, 宮下正夫, 野村 務他：Behçet 病の寛解期に併存した食道扁平上皮癌の 1 例。日臨外会誌 65 (増刊号)：483, 2004
- 7) 朝蔭正宏, 梅北信孝, 真栄城剛他：ペーチェット病に合併した直腸癌の 1 例。日臨外会誌 61 (増刊号)：467, 2000
- 8) 村上 望, 平野 誠, 宇野雄祐他：Behçet 病に合併した早期胃癌の 1 例。日臨外会誌 61：102—105, 2000
- 9) 石橋由朗, 小林克敏, 向井英晴他：ペーチェット病に合併した胃癌の 1 例。日消外会誌 31：1651, 1998
- 10) 高橋優宏, 高橋正純, 千葉泰彦他：ペーチェット病に合併して術後残胃穿孔をおこした胃癌の 1 例。神奈川医会誌 24：68—69, 1997
- 11) 藤田繁雄, 高尾哲人, 渡辺洋敏他：胃癌を合併した腸管ペーチェットに対する 1 切除例。日臨外会誌 54 (増刊号)：391, 1993
- 12) 大根田絹子, 野村 宏, 沖田 直他：胃癌の硬膜転移と DIC による硬膜下血腫を認めた神経ペーチェット病の 1 例。臨神経 30：333, 1990
- 13) 青井克行, 小山 徹, 石部陽二他：内視鏡的ポリプ切除術を行ったペーチェット病患者にみられた早期直腸癌に 1 例。広島医 43：992—995, 1990
- 14) 鎌田 徹, 山口明夫, 伏田幸夫他：S 状結腸癌手術直後に腸型 Behçet 病を併発した 1 例。日消外会誌 21：2331—2334, 1988
- 15) 井上修一, 荒川弘道, 井上義郎他：IIc 様進行胃癌を合併した Behçet 病の 1 例。Prog of Dig Endosc 消内視鏡の進歩 23：209—212, 1983
- 16) 下河辺正行, 緒方秀章, 犬丸雅比古他：Behçet 病に大腸癌を合併した 1 例。日消病会誌 80：938, 1983
- 17) Cengiz M, Altundag MK, Zorlu AF, et al: Malignancy in Behçet's Disease: A Report of 13 Case and a Review of the Literature. Clin Rheumatol 20: 239—244, 2001
- 18) 松本拓也, 古森公浩, 小野原俊博他：消化器癌合併腹部大動脈瘤手術症例の検討。日血管外会誌 10：75—80, 2001
- 19) 江里健輔, 竹中博昭：腹部大動脈瘤と併存する消化管悪性腫瘍 一期的同時手術。外科 58：1867—1869, 1996

A CASE OF TWO-STAGED OPERATION IN A PATIENT WITH ABDOMINAL ANEURYSM COMPLICATED WITH BEHÇET DISEASE AND COEXISTENT GASTRIC CANCER

Hiroyuki NAKAMOTO, Toshiyuki MINOURA, Michio ODA and Atsushi IMAMURA*

Department of Surgery, Rakusai New town Hospital, Kansai Medical University

*Department of Surgery, Kansai Medical University

A 51-year-old male patient who had been treated for Behçet disease since the age of 30, was found to have a gastric cancer, gross type 2, by endoscopic examination of upper gastrointestinal tract in Aug., 2003. In addition, he was diagnosed to have an infrarenal abdominal aneurysm by CT study. Abdominal aneurysmectomy with graft replacement was performed on Sept. 26th and gastrectomy on Oct. 10th. The postoperative course was generally uneventful and the patient was discharged on the 40th day of operation. However, the patient died 13 month later with appearance of multiple bone metastasis and cerebral hemorrhage due to DIC. This was a typical case of vascular Behçet disease, however, the combination of gastrointestinal tract malignancy is rare. Only 12 cases including ours have been reported in Japan so far. A staged operation was successful in this case, but a careful consideration should be made whether the operation should be staged or not.