

症例報告

長期間無治療で経過した腸型ベーチェット病の一例

国保中央病院外科

大山孝雄, 吉川高志,
安川十郎, 赤堀宇広

厚生会大腸肛門病センター外科

稲次直樹

A CASE REPORT OF INTESTINAL Behçet's DISEASE WITHOUT CLINICAL PROGRESS FOR LONG TERM

TAKAO OHYAMA, TAKASHI YOSHIKAWA, JURO YASUKAWA
and TAKAHIRO AKAHORI

Department of Surgery, Kokuho Chuo Hospital

NAOKI INATSUGU

Department of Surgery, Kenseikai Coloproctology Center

Received February 23, 2004

Abstract : A 31-year-old man was hospitalized in another hospital for massive melena on July 7, 1985. As the symptoms disappeared, he had not received a medical check for 14 years when he came to our hospital with a chief complaint of melena on August 7, 1999. There was an ulcer scar in the cecum found by endoscopic examination. It was cured conservatively, but a recurrence with a deep ulcer was diagnosed by endoscopy in October 1999. He had had multiple afta in his nose and folliculitis on his face and soma since the age of 12. Mesalazine was administered under a diagnosis of suspected intestinal Behçet's disease, after which melena was not found, but ulcer lesions recurred a few times. Medication is sometimes effective for Intestinal Behçet's disease, and so surgery should not be undertaken lightly.

Key words : Intestinal Behçet's disease, long term, conservative therapy

はじめに

ベーチェット病のうち腸型ベーチェット病は、従来回盲部に穿孔性あるいは穿通性の深い潰瘍を形成し、緊急手術を要し、術後の再発率も高い治療の困難な特殊型と考えられてきた。しかし最近、大腸内視鏡検査の進歩に

伴い、比較的軽症例が診断されるようになったとされる一方、ベーチェット病自体の軽症化なども議論されるようになってきている。今回我々は発症後、長期間無治療で経過した症例を経験したので報告する。

症例 31歳男性
家族歴 特記すべきことなし

既往歴 特記すべきことなし

現病歴 1985年7月7日意識消失を伴う大量下血により他院に入院。回盲部潰瘍および口腔内アフタを指摘され、クローン病またはベーチェット病を疑われたが、保存的に軽快し、以後通院しなかった。14年を経過した1999年8月7日、一週間続く血便を主訴に当院受診。精査目的に入院となる。腹痛、下痢、頻便などの消化器症状を認めず、また関節痛や発熱などの炎症を疑わせる症状も認めなかった。

入院時現症 血圧120/70、脈拍90/分、体温37.3℃、意識清明。眼瞼結膜に貧血を認め、眼球結膜に黄染を認めず。表在リンパ節を触知せず。腹部は平坦・軟で圧痛を認めず、肝・脾・腎・腫瘍を触知せず。口腔内アフタと、顔面および躯幹に毛嚢炎様皮疹を認めるが、眼症状や肛門病変を認めない。

入院時一般検査 中等度の貧血を認める以外に異常を認めない。(Table 1)

臨床経過 初発時から現在までの経過を表2に示す。口腔内アフタは1982年頃より自覚し、現在まで完治せず、増悪と緩解を繰り返している。顔面および躯幹に多発する毛嚢炎様皮疹は、1985年頃より現在まで持続的に認められる。下血は1985年初発時と1999年8月当院初診時に一週間持続する下血および10月に腹痛を伴う少量の下血の計3回であった。回盲部潰瘍は、1985年初発時と、1999年10月および2000年10月の計3回確認された。

治療はmesalazineを2250mg/日から開始し、1500mg/日に減量して、現在も投与を続けている。入院加療は1985年に約1ヶ月間と1999年に10日間の2回で、初回入院時に輸血が行われた。CRP値は1999年に軽度の上昇を認めたが、2000年、2001年と徐々に改善し、現在は正常値を示している。

大腸内視鏡検査 1985年初発時の大腸内視鏡所見をFig.1に示す。盲腸パウヒン弁対側(Fig.1-a)および上行結腸(Fig.1-b,c)に深掘れ潰瘍を、回腸末端にアフタ様病変(Fig.1-d)を認めた。1999年8月当院初診2日目には盲腸に潰瘍瘢痕を認めるのみであったが(Fig.2-a)、1999年10月下血時には盲腸に深掘れ潰瘍を認めた(Fig.2-b)。2000年10月経過観察時には盲腸から上行結腸にかけて広範な浅い潰瘍を認めたが(Fig.2-c)、2001年7月には盲腸に瘢痕を認めるのみであった(Fig.2-d)。

病理学的検査 回盲部潰瘍における生検の結果は、いずれも非特異的炎症所見であった。

考 察

腸型ベーチェット病は出血、穿孔の頻度が高く、診断時すでに病変が進行し、ほとんどの症例に外科的切除が行われてきた¹⁾。このため本症を長期間保存的に経過観察した報告は少ない。本邦において5年以上保存的に治療され、手術に至らなかった自検例を含む7例をTable 3に示す。平均発症年齢は34.7歳で、最近の報告^{8,9)}と同様

Table 1. laboratory data on admission

末血検査

RBC	325	×	10 ⁴ /mm ³
Hb	9.5		g/dl
Ht	28.7		%
WBC	8380		/mm ³
Plt	33.1	×	10 ⁴ /mm ³

LDH	252	IU/l
ALP	132	IU/l
γ-GTP	11	IU/l
LAP	38	IU/l
BUN	15.4	mg/dl
Cre	0.7	mg/dl
TP	6.6	g/dl
Alb	3.9	g/dl
CRP	0.2	mg/dl
Na	140	mEq/l
K	3.9	mEq/l
Cl	106	mEq/l

生化学検査

T-Bil	0.7	IU/l
AST	12	IU/l
ALT	9	IU/l

Table 2. Clinical course of the case

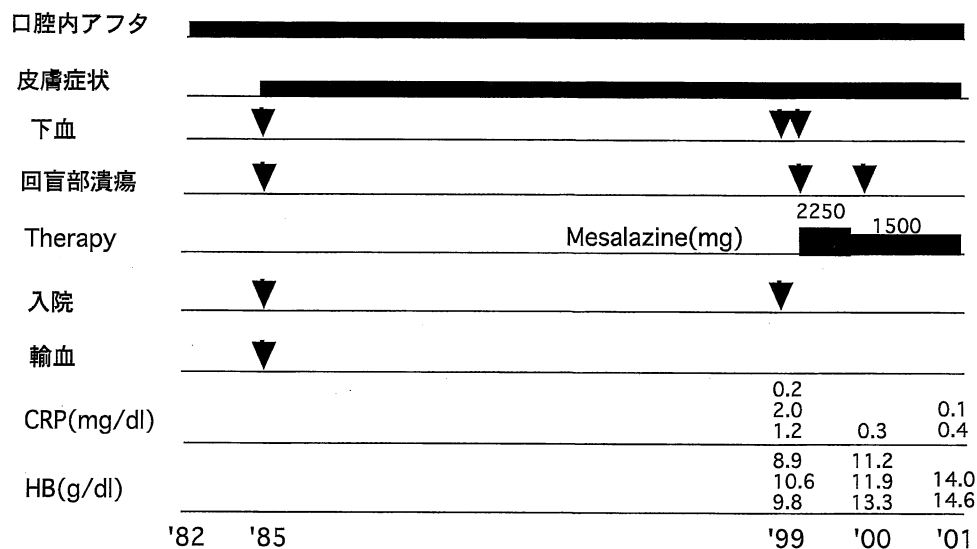
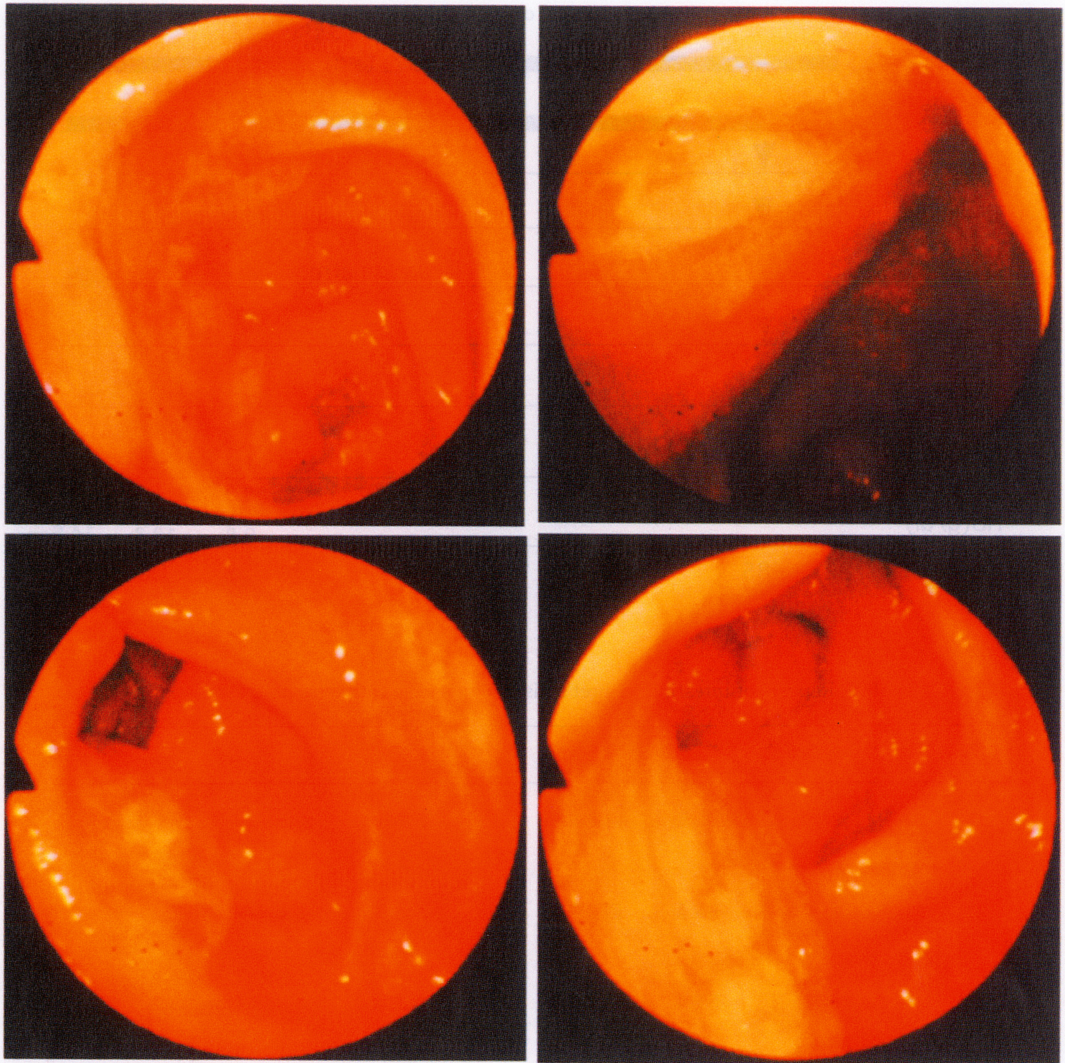


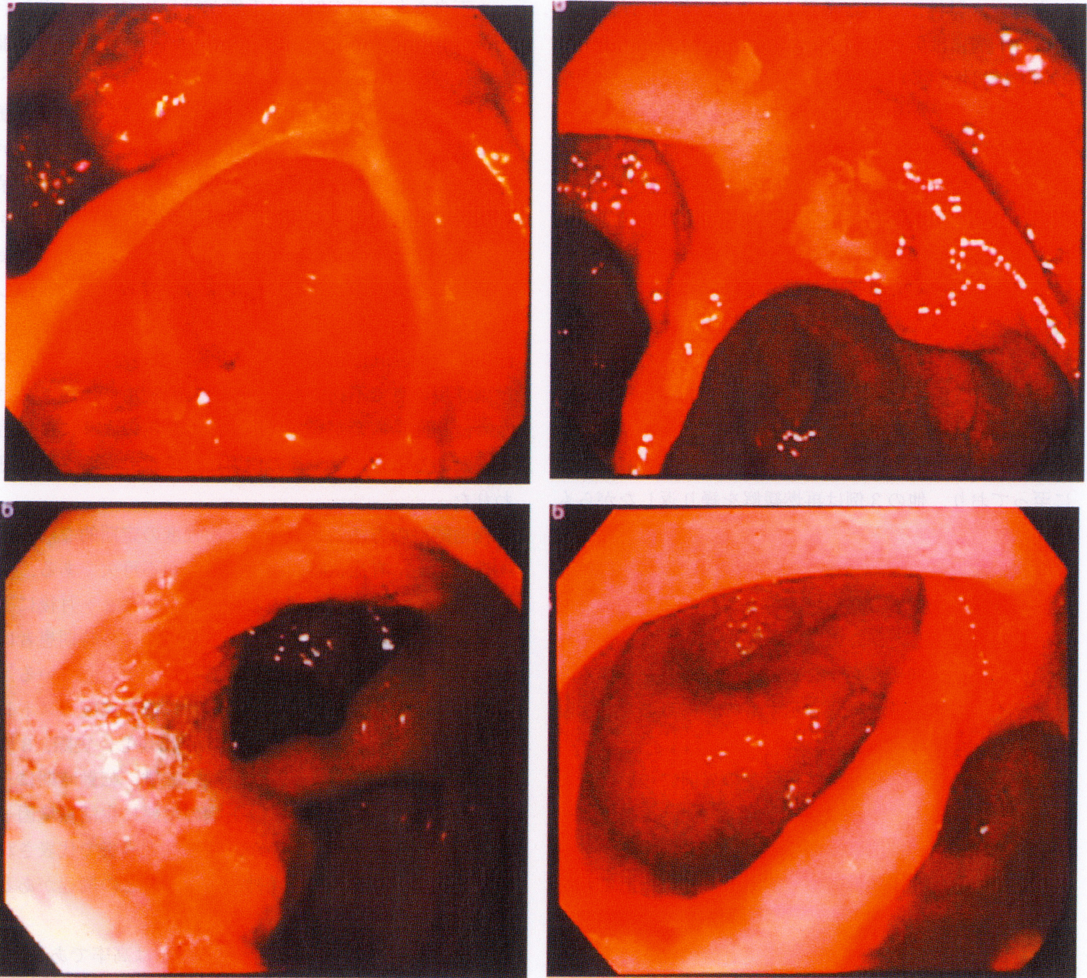
Table 3. Reports of intestinal Behçet's disease in conservative treatment in Japan

症例	年齢	性	経過期間	病型	病変部位	潰瘍	治療
1	62	M	8年9ヶ月	不全型	回腸末端	深掘れ	Salazosulfapyridine, Mesalazine
2	50	F	11年4ヶ月	不全型	回腸末端	深掘れ	Salazosulfapyridine
3	48	M	6年8ヶ月	不全型	回腸末端	深掘れ	なし
4	30	M	5年7ヶ月	不全型	回腸末端	深掘れ	Salazosulfapyridine, Predonine
5	46	M	7年2ヶ月	疑い	横行結腸-盲腸 回腸	アフタ	Salazosulfapyridine
6	40	M	6年10ヶ月	不全型	回腸末端	深掘れ	なし
自検例	31	M	16年3ヶ月	疑い	盲腸-上行結腸	深掘れ	Mesalazine



a	b
c	d

Fig. 1. Colonoendoscopic findings in 1985
a : Cecum b, c: Ascending colon d : Ileum



a	b
c	d

Fig. 2. Colonoendoscopic findings in our hospital
a : 1999.8.9 b : 1999.10.4 c : 2000.10.16 d : 2001.7.2

であった。男性が6例と多数をしめた。飯田ら⁹⁾はパーチェット病には男女差がないのに対し、腸型パーチェット病では男性が多いと報告しているが、長期保存的観察例に限ると、この傾向はより顕著である。1987パーチェット病診断基準¹⁰⁾に基づく病型では完全型はなく、不全型が5例、疑い2例であった。ほとんどの症例が一度は深掘れ潰瘍を呈しながらも、無治療もしくは内科的治療によく反応しながら消退、再燃を繰り返していた。

多田ら²⁾は6年10ヶ月にわたって経過観察した症例で、回腸末端の小さな多発潰瘍が治療、再燃を繰り返し、比較的長い経過で典型的な下掘れ潰瘍に進展したと述べている。しかし、飯田ら⁹⁾は、5症例を8ヶ月から11年4ヶ月間経過観察し、潰瘍は保存的治療に反応しつつ縮小、瘢痕化した。経過中に再燃増大し、2例は手術に至っており、他の3例は再燃緩解を繰り返しながらも保存的に治療されたと報告している。本症例においても初発時に深掘れ潰瘍を呈した後、長期間無症状で経過し、大腸内視鏡検査による経過観察中も短期間に潰瘍は形成と消退を繰り返した。このことは腸型パーチェット病のなかには、潰瘍病変が必ずしも一元的な経過をたどるのではなく、多彩な進展様式を示すものがあることを示唆している。

腸型パーチェット病と単純性潰瘍の異同についてはこれまでに議論が尽くされており、押谷ら⁴⁾は、腸型パーチェット病と単純性潰瘍との鑑別に、再発性口腔内アフタが重要であり、単純性潰瘍と診断する際には、これを伴うものを除外すべきとしている。しかし長期経過例からみた最近の報告でも、単純性潰瘍と腸型パーチェット病を独立した疾患と捉える考え方¹¹⁾と、単純性潰瘍を腸型パーチェット病の一亜型とする考え方¹²⁾にわかれ、結論を得ていないのが現状である。本症例は腸管病変の出現する3年前から口腔内アフタを認め、また皮膚病変は腸管病変と同時期に出現し、いずれも現在まで完治することなく持続しており、腸型パーチェット病疑い例と診断した。

腸型パーチェット病を完全型・不全型と疑い例で比較した検討で、前者は潰瘍病変が広範で浅く、また非難治例が多いのに対し、後者は回盲部に限局した深掘れ型が多く、難治例が多い¹³⁾とする報告があり、一般に腸管病変が優位なほど予後は不良とされている。しかし、本症例は初発時に大量下血を伴う重篤な病態を示したにもかかわらず、長期間無治療で経過しており、特異な経過と言えよう。

治療は腸管の安静や栄養療法、ステロイドを中心とした薬物療法¹⁴⁾などの内科的治療と、穿孔や出血コントロ

ール不良などの重症例には手術が行われている。また手術後の再発潰瘍への無水エタノール散布が有効との報告¹⁵⁾もある。パーチェット病の中でも腸型パーチェット病は、より高用量のステロイド投与が必要で¹⁶⁾、薬物療法に抵抗する傾向があり、これまで手術に至る例が多かった。しかし近年長期経過例の報告が増えるにつれ、保存的治療を有効とする報告が散見されるようになってきた。北内ら¹⁷⁾はSalazosulfapyridineおよびmesalazineが長期間の潰瘍のコントロールに有効であったと報告している。今回の検討でもステロイドよりSalazosulfapyridineやmesalazineが多く使用されていた。ステロイドは副作用の点で不利であり、また長期使用には適さないため、初回腸病変が軽症な例や、本症例のように自然治癒歴がある場合には、その使用には慎重であるべきと思われる。

経過観察の方法として、年一回程度の定期的な内視鏡検査に加え、有症状時の内視鏡検査が不可欠である。本症例においては瘢痕を認めるのみであった2ヶ月後に下血をきたし、深掘れ潰瘍が確認された。この時期患者は転職により過度のストレス下にあったと申告している。詳細な病歴聴取をおこなうと、これ以前も過度のストレスや過労を自覚した時に腹部症状が出現し、実際、3度の下血出現時期は各々、高校受験、転職、転勤時期に一致していた。腸型パーチェット病の増悪に生活環境因子が関連するとの報告はないが、潰瘍性大腸炎で代表される炎症性腸疾患と同様に精神的ストレスとの関連があるのかもしれない。

腸型パーチェット病の手術後の再発は高率であり¹⁸⁾、保存的治療によく反応する症例も存在することを念頭におき、穿孔など緊急手術が必要な場合以外は、まず保存的治療を試みるべきであると思われた。

文 献

- 1) 忠史、築山順一、正宗 研、他：腸型 Behçet 病の1例。Gastroenterol. Endosc. **23** : 1424-1430, 1981.
- 2) 多田正大、西脇和善、西村伸治、他：X線学的に長期間経過観察しえた intestinal Behçet 病の1例。日内会誌。 **71** : 325-330, 1982.
- 3) 飯田三雄、小林広幸、松本主之、他：腸型 Behçet 病および単純性潰瘍の経過：X線像の推移を中心として。胃と腸 **27** : 287-302, 1992.
- 4) 押谷伸英、川島大知、稲川 誠、他：腸管パーチェット病および単純性潰瘍の臨床的検討。日本大腸肛門病会誌 **53** : 116-122, 2000.
- 5) 内信太郎、大畑 博、黒田留未、他：Salazosulfa-

- pyridine および mesalazine 投与にて非切除のまま長期経過観察している腸型 Behçet 病の 1 例. 日本消化器病学会雑誌 95 : 140-144, 1998.
- 6) 寺本龍生, 小平 進, 古川和男, 他 : 6 年間の経過観察中に再発を繰り返した Behçet 病の 1 例. 胃と腸 27 : 343-347, 1992.
- 7) Kasahara Y, Tanaka S, Nishio M, et al : Intestinal involvement in Behçet's disease : Review of 136 surgical cases in the Japanese literature. Dis. Col. Rect. 24 : 103-106, 1981.
- 8) 川清孝, 青松和揆, 青木哲哉, 他 : 長期経過例からみた腸型 Behçet 病と単純性潰瘍の病態. 胃と腸 38 : 150-158, 2003.
- 9) 間 照, 岩松 宏, 杉村一仁, 他 : 長期経過例からみた腸型 Behçet 病と単純性潰瘍の病態. 胃と腸 38 : 173-181, 2003.
- 10) 松川正明, 林 量司, 平嶋勇人, 他 : 腸型 Behçet 病と単純性潰瘍の長期予後. 胃と腸 38 : 209-216, 2003.
- 11) 厚生省特定疾患ベーチェット病調査研究班 : ベーチェット病診断の手びき. ベーてつと別府に関する研究昭和 61 年度研究業績. 1987, pp.11-29.