

尿道皮膚瘻造設を要するも陰茎を温存しえた 陰茎壊疽性膿皮症の1例

畑野翔太郎¹, 兼松 明弘², 高田 秀明¹
水野 桂¹, 土橋 一成¹, 西川 信之¹
高尾 典恭¹, 小倉 啓司¹, 石戸谷 哲¹
¹大津赤十字病院, ²兵庫医科大学

A CASE OF PENILE PYODERMA GANGRENOSUM TREATED BY URETHROCUTANEOSTOMY WITHOUT PENECTOMY

Shotaro HATANO¹, Akihiro KANEMATSU², Hideaki TAKADA¹,
Kei MIZUNO¹, Kazunari TSUCHIHASHI¹, Nobuyuki NISHIKAWA¹,
Noriyasu TAKAO¹, Keiji OGURA¹ and Satoshi ISHITOYA¹
¹The Department of Urology, Japanese Red Cross Otsu Hospital
²The Department of Urology, Hyogo College of Medicine

We herein report a case of penile pyoderma gangrenosum that was successfully treated with prednisolone and by urethrocutaneostomy without penectomy. A man in his 50s visited our department because of painful urination. Pyuria and redness of the external urethral meatus were present. Treatment for urethritis with antibiotics did not improve his symptoms, and a painful ulcer and fistula formation between the glans and urethra subsequently developed. Microbiological cultures revealed no growth, and punch biopsy showed only nonspecific inflammation, leading to a diagnosis of penile pyoderma gangrenosum. We initiated prednisolone (PSL) at 40 mg once daily following placement of an indwelling suprapubic cystostomy tube for dysuria. However, the treatment was ineffective. Therefore, the dosage of PSL was increased to 65 mg once daily. The ulcer disappeared, but urethral stricture remained. Six hundred days after PSL treatment, we performed urethrocutaneostomy. The patient became free of the cystostomy and was able to urinate spontaneously. In recent years, there has been an increasing number of reports of penile preservation in the treatment of penile pyoderma gangrenosum, but knowledge regarding which patients require urethral surgery is lacking. Urologists should keep in mind increased susceptibility to infection, pathergy and possible recurrence, when considering urethral surgery for penile pyoderma gangrenosum.

(Hinyokika Kyo 67 : 331-337, 2021 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_67_7_331)

Key words : Penile pyoderma gangrenosum, Urethrocutaneostomy

緒 言

壊疽性膿皮症は、原因不明の壊死性潰瘍や膿瘍を形成する慢性炎症性皮膚疾患である。全身炎症性疾患の合併が多く、免疫系を介する機序が関連すると考えられており、ステロイドなどの免疫抑制薬が治療の中心となる。

陰茎に発症する壊疽性膿皮症では治療抵抗性の海綿体陰茎膿瘍と診断されていたものがあつたと思われるが、2015年¹⁾・2019年²⁾と早期に壊疽性膿皮症と診断しステロイドなどで陰茎を温存できた症例が報告されて来ている。

一方で、陰茎を温存しえたのちに尿道再建を行った報告はわれわれの調べた限り1999年にあつた1例のみであつた³⁾。今回われわれは陰茎壊疽性膿皮症を早期診断しプレドニゾロン (PSL) 治療にて局所症状コ

ントロール後、残存した尿道狭窄に対して尿道皮膚瘻造設術を行い、自排尿を維持しえたので報告する。

症 例

患者 : 50歳代, 男性
主 訴 : 排尿時痛
既往歴 : 201X-5年 関節リウマチ
内 服 : プレドニゾロン 5 mg/day, ミゾリビン 150 mg/day, アバタセプト 125 mg/week
家族歴 : 特記すべき事項なし
現病歴 : 排尿時痛を自覚し, 201X年12月26日当院受診した。尿沈渣で膿尿を認めたため, 尿路感染症と診断しレボフロキサシン 500 mg/日処方, 反応不良のため201X+1年1月5日スルファメトキサゾール・トリメトプリム (ST 合剤) 4錠/日に変更した。しかし病状は進行し1月19日亀頭部先端の自壊と疼痛が



Fig. 1. Physical examination findings. A: Front view of penile glans before treatment. B: Side view of penile glans before treatment. Before prednisolone treatment, a painful ulcer and fistula at the external urethra were present in the glans penis. C: Ventral view of penile glans after treatment. D: Dorsal view of penile glans after treatment. After prednisolone treatment, the painful ulcer and fistula healed and the external urethra meatus developed a pin-hole opening in the frenulum of the penis.

出現したため、1月20日膀胱瘻造設の上、入院となった。

入院時現症：体温 37°C、疼痛を伴う陰茎外尿道口—冠状溝に尿道との瘻孔を認め、亀頭部先端は図の如く自壊していた (Fig. 1A, B)。

入院時検査成績：WBC 11,500/ μ l, Hb 14.2 g/dl, Plt 39.5×10^4 / μ l, CRP 7.2 mg/dl と炎症所見を認めるものの、他に大きな異常はみられなかった。

陰茎 MRI 画像：尿道口周囲に T2 脂肪抑制で高信号、拡散強調高信号。膿瘍形成を疑う所見であった (Fig. 2)。

臨床経過：潰瘍部パンチ生検を施行したが、好中球を含む炎症細胞の高度浸潤を認めるのみで特異的所見は見られなかった。尿培養・スワブ培養はともに陰性であった。これらの検査よりフルニエ壊疽などの感染症、悪性疾患は否定的と判断した。また口腔内アフタ・眼症状・多発単神経障害といった所見が見られ

ず、ベーチェット病や血管炎は考えにくいことから、除外的に壊疽性膿皮症と診断した。当初 PSL 40 mg より開始したが潰瘍病変残存、PSL 65 mg に増量し潰瘍・瘻孔は消失し寛解を得た。PSL 漸減中リウマチ性角膜炎の増悪に伴い他院リウマチ内科で PSL の増量・再度漸減を行ったものの、陰茎病変の増悪は認めなかった。なお PSL 増量期間は ST 合剤の予防的内服を継続した。尿道は包皮小体根部に pinhole 状に開口した状態であったが、亀頭部の形状は回復していた (Fig. 1C, D)。膀胱瘻からの順行性尿道造影で膀胱から冠状溝近くの尿道まで異常を認めなかった。他院リウマチ内科と相談し PSL 10 mg で安定した段階での外科的治療介入の方針とした。PSL 増量開始後600日時点で尿路再建術を行った。術中に経膀胱瘻尿道鏡を尿道健常部先端まで挿入し、触診で位置を確認したところ冠状溝直下までは健常尿道であった。冠状溝付近は壊疽性膿皮症の影響が残っていたのでここから離れ



Fig. 2. Penile MRI: (A) High signal on T2 weighted fat-suppressed image. (B) High signal on diffusion-weighted image.

て陰茎中部で尿道皮膚瘻を作成する方針とし、陰茎皮膚を約 10 mm 正中切開、尿道を最小限剥離し、5-0 PDS で尿道と皮膚全層を縫合した。膀胱瘻は術中に抜去し、尿道カテーテルを 1 週間留置後抜去した。術後の排尿状態は座位排尿で、陰茎を 12 時方向に少し引っ張ることでスムーズな自排尿が得られている。

術後半の時点で下肢・陰茎根部に潰瘍性病変の再燃を認めたものの亀頭部や手術創とは別部位で排尿障害はなく、再燃部位はステロイド増量で軽快した。術後 1 年以上経過するが、壊疽性膿皮症の再燃は認めていない。

考 察

壊疽性膿皮症は Brunsting らにより 1930 年に報告された疾患⁴⁾で、細菌によらない壊死性潰瘍を形成する慢性炎症性皮膚疾患である。全身炎症性疾患の合併や外傷が起点となる症例が報告されているが確固たる病因は解明されていない。病理組織学的には好中球性潰瘍が見られるものの、特異的な所見はないとされる。各種培養が陰性であることや症状から他疾患を除外することで壊疽性膿皮症と診断されている。壊疽性膿皮症は大きく、①急激な発症と急速な病変の拡大を特徴とするものと、②くすぶり型の緩徐な経過をとるものの 2 種類に分けられる⁵⁾。また Powell らは壊疽性膿皮症を潰瘍型・膿疱型・水疱型・増殖型の 4 種類に亜型分類しているが、病型によって臨床像や病変の進行速度、合併しやすい疾患が異なると報告している⁶⁾。

壊疽性膿皮症では外的刺激により病状が増悪するこ

と (pathergy) が知られている⁷⁾。一方で陰茎壊疽性膿皮症と診断された症例は調べうる限り本邦での報告は自験例を含めて 27 例目 (Table 1) であり、泌尿器科医師の認知度は高くない。陰茎に発症した場合、著明な浮腫や腫脹により陰茎海綿体膿瘍と診断されることがあり、デブリドマンや切開排膿を行うことでむしろ病状を増悪させる。これまでの本邦の報告 27 例中 3 例で初期治療として外科的介入を行い、その内 1 例では陰茎切断を余儀なくされた⁸⁾。2015 年に飯田ら¹⁾が、2019 年に高橋ら²⁾が、陰茎膿瘍と鑑別困難であったものの壊疽性膿皮症と診断し陰茎を温存できた症例を報告している。今回もそれらの報告を参考に当疾患を疑い病変部位へのデブリドマンや切開排膿などの外科的処置を回避の上 PSL を導入し、陰茎温存が可能であった。

壊疽性膿皮症の治療としては、PSL で加療され軽快に至る例が多く、陰茎壊疽性膿皮症でも PSL の有効性が知られている (Table 1)。しかし、PSL の使用量は Table 1 のごとくであり、治療中は易感染状態と考えるべきである。

陰茎壊疽性膿皮症の再燃に関しては本邦報告 27 例では当症例だけであったが、壊疽性膿皮症全体では 24% の再燃率が報告されている⁹⁾。これは陰茎壊疽性膿皮症が長期に経過観察されていないことが原因として考えられる。今回われわれは壊疽性膿皮症の再燃を下肢・陰茎根部に潰瘍性病変の再燃を認めた。亀頭部や手術創とは別部位であったものの、尿道手術を検討する症例では再燃を念頭に術式を選択する必要があると

Table 1. Summary of cases of pyoderma gangrenosum of the penis reported in Japan

外科的治療先行

症例	報告者	発表年	年齢	合併症	治療・経過	病態	手術
1	川上ら ⁸⁾	1997	39	潰瘍性大腸炎	陰茎包皮切除後、改善せず、PSL 60 mg 使用するも陰茎龟头脱落	包皮龟头脱落	包皮切除術（デブリドマン） 包皮再建術
2	田口ら ¹⁰⁾	2015	54	なし	陰茎部分切除で改善せず、PSL 20 mg で改善	龟头部中心に広範囲の炎症 尿道カテーテル留置状態	陰茎部分切除術
3	中丸ら ¹¹⁾	2017	54	なし	ステロイド行わず、陰茎部分切除	フルニエ壊疽と判断される	陰茎部分切除術

内科的治療後残存病変なし

症例	報告者	発表年	年齢	合併症	治療・経過	残存病変	手術
4	阿部ら ¹²⁾	1983	20	潰瘍性大腸炎	PSL 40 mg で改善	—	—
5	小西ら ¹³⁾	1996	60	なし	ステロイド内服投与量記載なし	—	—
6	佐藤ら ¹⁴⁾	2002	32	潰瘍性大腸炎	PSL 20 mg で改善せず、40 mg で改善	—	—
7	柑本ら ¹⁵⁾	2005	77	なし	PSL 40 mg で改善	—	—
8	田畑ら ¹⁶⁾	2005	77	なし	PSL 30 mg で改善せず、PSL 40 mg と CyA 200 mg で改善	—	—
9	高山ら ¹⁷⁾	2007	50	なし	ステロイド 30 mg で改善	—	—
10	永尾ら ¹⁸⁾	2011	68	なし	メチルプレドニン 1 g 3 日後 PSL 30 mg で改善	—	—
11	高橋ら ¹⁹⁾	2012	46	なし	PSL 1 mg/kg で改善せずステロイドパルス+免疫抑制薬で改善	—	—
12	島村ら ²⁰⁾	2012	70	関節リウマチ	PSL は自己中断、タクロリムス軟膏で軽快	—	—
13	Satoh ら ²¹⁾	2013	89	骨髄異形成症	全身ステロイド治療で改善	—	—
14	緋田ら ²²⁾	2013	66	潰瘍性大腸炎	PSL 30 mg で改善せず、ステロイドパルス+CyA 200 mg+MINO 100 mg で改善	—	—
15	徳永ら ²³⁾	2014	45	なし	PSL 40 mg で改善	—	—
16	Usui ら ²⁴⁾	2016	78	パゾパニブ内服	PSL 50 mg で改善	—	—
17	飯田ら ¹⁾	2015	78	なし	PSL 20 mg と CyA 100 mg + MINO で改善	—	—
18	中丸ら ¹¹⁾	2017	90	多形性骨髄腫	PSL 60 mg で改善	—	—
19	杉山ら ²⁵⁾	2018	59	なし	非ステロイド炎症剤で改善	—	—
20	高橋ら ²⁾	2019	67	なし	PSL 30 mg で改善	—	—

内科的治療後残存病変あり

症例	報告者	発表年	年齢	合併症	治療・経過	残存病変	手術
21	牧角ら ³⁾	1999	38	なし	PSL 40 mg で改善せず、ステロイドパルスで改善	尿道狭窄	外尿道口形成術
22	奈路田ら ²⁶⁾	2004	46	ベーチェット病	PSL 投与量記載なし	勃起時の左背側湾曲	—
23	野田ら ⁵⁾	2005	46	Behcet 病	PSL 20 mg で改善せず、50 mg で改善	瘢痕形成・陰茎屈曲	—
24	浦野ら ²⁷⁾	2011	57	なし	PSL 30 mg で改善せず、CyA 4 mg/kg で改善	陰茎変形・排尿障害	—
25	佐藤ら ²⁸⁾	2012	64	B型肝炎	PSL 40 mg で改善せず、60 mg で改善	尿道瘻・瘢痕による変形	—
26	船田ら ²⁹⁾	2017	76	スニチニブ内服	ステロイド内服投与量詳細不明	尿道皮膚の瘻孔形成	陰茎全摘、尿道会陰瘻
27	当症例	2020	55	関節リウマチ	PSL 40 mg で改善せず、65 mg で改善	龟头部尿道狭窄	尿道皮膚瘻造設術

考えられる。

当症例では自壊した亀頭部は PSL にて自然回復したが、狭窄を来たした尿道は回復しなかった (Fig. 1C, D)。本邦報告例では27例中24例で初期治療として内科的治療がされているが、残存病変がある症例が7例 (29%) でみられた。そのうち外科的治療を行わなかったのは4例で、多くは陰茎の変形・瘢痕であった。残りの3例で外科的介入を行い、1例で陰茎全摘、当症例を含めて2例で陰茎を温存し再建を行った。

陰茎壊疽性膿皮症に対して陰茎温存を伴う尿道再建手術の知見は現時点ではまだ乏しい。亀頭部の尿道狭窄の治療には外尿道口切開、代用組織を用いた再建、尿道会陰瘻、尿道皮膚瘻などが挙げられる (Fig. 3A~D)。陰茎壊疽性膿皮症の尿道再建には先述のように、①ステロイド長期内服による易感染状態、②外的刺激により増悪 (pathergy) する可能性、③壊疽性膿皮症再燃の可能性を考慮する必要がある。

尿道の手術方法により排尿様式は変化するため、患者の生活の質に影響することも念頭に置かなければな

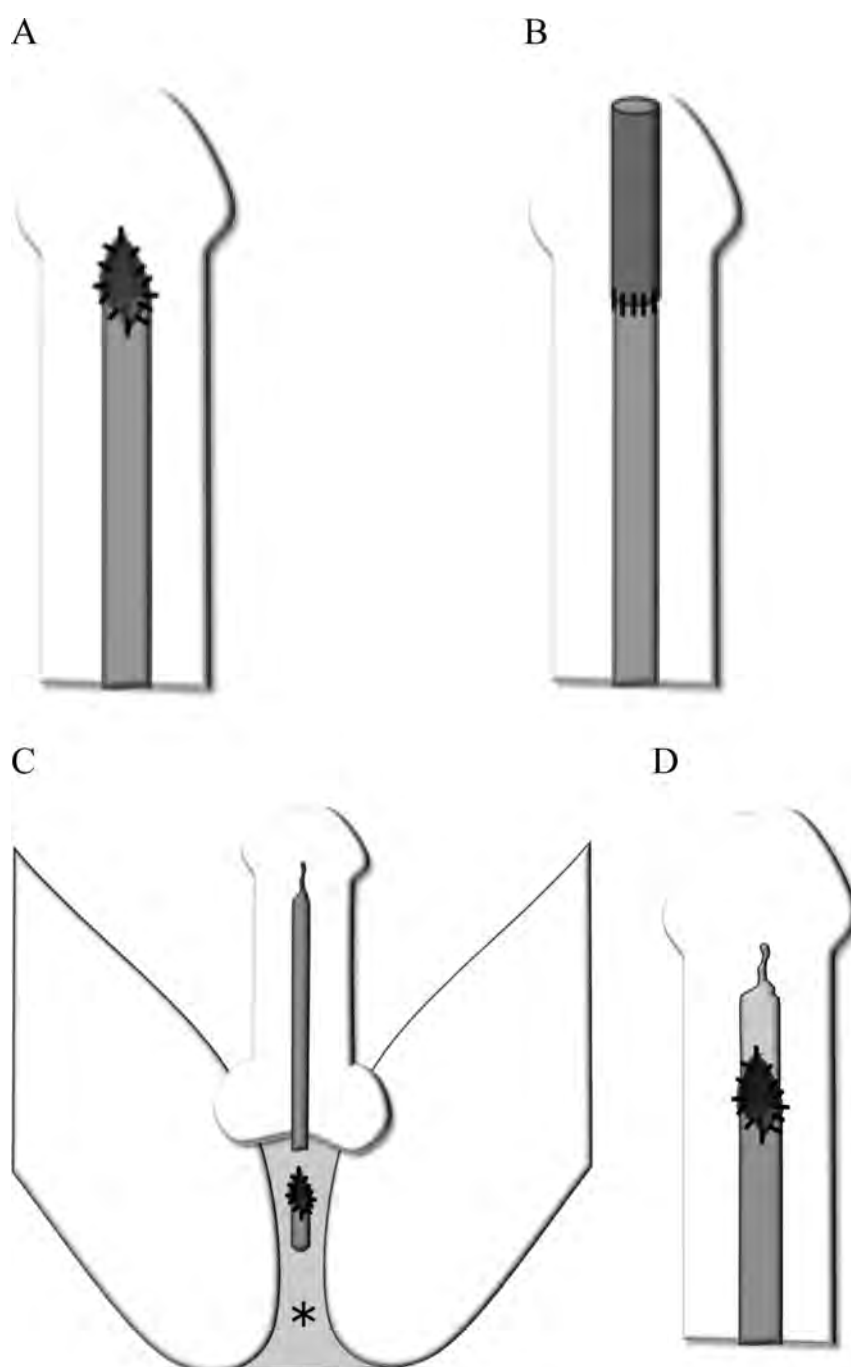


Fig. 3. Four approaches for treatment of urethral stricture of the glans. A: Meatotomy. B: Reconstruction with flaps or grafts. C: Perineal urethrostomy. D: Cutaneous urethrostomy.

らない。本邦で唯一陰茎温存後の再建を行った牧角らの報告³⁾では寛解後1年で外尿道口再建術を施行している。しかしステロイドによる易感染性・pathergyの面から外尿道口切開や代用組織を用いた再建は長期の安定が不明な事より、今回われわれは同術式を回避した。また尿道会陰瘻は比較的手術侵襲が強く、肛門と尿道会陰瘻との距離が短く感染合併症のリスクも高いと考えた。以上より当症例では残存正常尿道を可能な限り温存することも考え、陰茎部尿道中央部に尿道皮膚瘻を造設した (Fig. 3D)。

当症例は術後壊疽性膿皮症の再燃がありながら尿路には問題なく、さらなる尿道手術を加えることなく1年以上経過している。陰茎壊疽性膿皮症の尿道再建についてはあまり報告がなく、適切な手術法の検討については今後の症例の蓄積が必要と思われるが、本術式は現時点では有効で患者満足度も高いと思われた。

結 語

陰茎潰瘍を伴った陰茎壊疽性膿皮症の1例を経験した。PSLによる治療にて陰茎切断を回避し、残存病変に対して陰茎中部に尿道皮膚瘻を造設することで自排尿可能となった。

本論文の要旨は第241回日本泌尿器科学会関西地方会(2019年5月25日)で発表した。

文 献

- 1) 飯田啓太郎, 水野健太郎, 河合憲康, ほか: 陰茎海綿体膿瘍を初期症状とした陰茎壊疽性膿皮症の1例. 泌尿紀要 **61**: 115-119, 2015
- 2) 高橋修平, 沼倉一幸, 久保恭平, ほか: ステロイド投与により陰茎切断を回避できた陰茎壊疽性膿皮症の1例. 泌尿紀要 **65**: 219-222, 2019
- 3) 牧角和彦, 古畑壮一, 柳沢直子, ほか: 陰茎壊疽性膿皮症の1例. 臨泌 **53**: 809-811, 1999
- 4) Brunsting LA, Goeckerman WH and O'Leary PA: Pyoderma (ecthyma) gangrenosum: clinical and experimental observation in five cases occurring in adults. Arch Derm Syphilol **22**: 655-680, 1930
- 5) 野田利紀, 滝脇弘嗣, 荒瀬誠治, ほか: 陰茎に生じ、後に変形が残った壊疽性膿皮症の1例. 皮膚臨床 **47**: 413-417, 2005
- 6) Powell FC, Su WP and Perry HO: Pyoderma gangrenosum: classification and management. J Am Acad Dermatol **34**: 395-409, 1996
- 7) Wollina U: Clinical management of pyoderma gangrenosum. Am J Clin Dermatol **3**: 149-158, 2002
- 8) 川上芳明, 大沢哲雄, 中村 章, ほか: 潰瘍性大腸炎に合併した陰茎壊疽性膿皮症の1例. 泌尿器外科 **10**: 85, 1997
- 9) Inoue S, Furuta J, Fujisawa Y, et al.: Pyoderma gangrenosum and underlying diseases in Japanese patients: a regional long-term study. J Dermatol **44**: 1281-1284, 2017
- 10) 田口 真, 井上貴昭, 西田晃久, ほか: Furnier壊疽との鑑別に難渋した陰茎壊疽性膿皮症の1例. 泌尿紀要 **61**: 459-463, 2005
- 11) 中丸 聖, 谷村裕嗣, 水田栄樹, ほか: 亀頭部に生じた壊疽性膿皮症の2例. 皮膚病診療 **39**: 37-40, 2017
- 12) 阿部稔彦, 溝口昌子, 高橋 久, ほか: 潰瘍性大腸炎を伴う亀頭部初発の壊疽性膿皮症. 日皮会誌 **93**: 552, 1983
- 13) 小西洋子, 中井利容, 末木博彦, ほか: 臨床的に有棘細胞癌を思わせた陰茎に生じた壊疽性膿皮症の1例. 日皮会誌 **109**: 1072-1073, 1996
- 14) 佐藤香織, 永井泰基, 草間美紀, ほか: 陰茎の潰瘍として初発した壊疽性膿皮症の1例. 臨皮 **56**: 610-611, 2002
- 15) 柑本康夫, 稲垣 武, 射場昭典, ほか: フルニエ壊疽に類似した陰茎壊疽性膿皮症の1例. 泌尿紀要 **51**: 411-415, 2005
- 16) 田畑伸子, 江川貞恵, 黒木 茂: 陰茎の壊疽性膿皮症. 仙台赤十字病医誌 **14**: 61-65, 2005
- 17) 高山健彦, 千明信一: 亀頭部壊疽性膿皮症の1例. 日形会誌 **27**: 535, 2007
- 18) 永尾 淳, 山本 豊, 曾和順子, ほか: 陰茎に生じた壊疽性膿皮症の1例. 皮膚臨床 **53**: 1287-1290, 2011
- 19) 高橋宏治, 遠山哲夫, 大和行男, ほか: 陰茎亀頭部に生じた壊疽性膿皮症の1例. 日皮会誌 **122**: 2698, 2012
- 20) 島村智江, 西 薫, 橋本 任, ほか: タクロリムス軟膏が奏功した陰部の壊疽性膿皮症 (PG) の1例. 日皮会誌 **122**: 62, 2012
- 21) Satoh M and Yamamoto T: Genital pyoderma gangrenosum: report of two cases and published work review of Japanese cases. J Dermatol **40**: 840-843, 2013
- 22) 緋田哲也, 大島三佳, 石上剛史, ほか: 陰茎に生じた壊疽性膿皮症の1例. 西日皮 **75**: 377, 2013
- 23) 徳永茉以, 野々村優美, 林 雄二郎, ほか: 陰茎のみに生じたPGの1例. 日皮会誌 **124**: 797, 2014
- 24) Usui S, Otsuka A, Kaku Y, et al.: Pyoderma gangrenosum of the penis possibly associated with pazopanib treatment. J Eur Acad Dermatol Venereol **30**: 1222-1223, 2016
- 25) 杉山恭平, 日柴喜公輔, 室 祐介, ほか: 非ステロイド抗炎症剤のみで治癒を得た恥骨部陰茎壊疽性膿皮症の1例. 泌尿紀要 **64**: 424, 2018
- 26) 奈路田拓史, 原田明典, 岸本大輝, ほか: 当初ペロニー病と考えられた壊疽性膿皮症の1例. 臨皮 **56**: 610-611, 2004
- 27) 浦野聖子, 飯尾 健: 亀頭に生じた陰茎壊疽性膿皮症: 皮膚臨床 **53**: 924-925, 2011
- 28) 佐藤 英, 安田聖人, 金森佑太, ほか: 亀頭部に生じた壊疽性膿皮症の1例. 臨皮 **66**: 687-690, 2012
- 29) 船田 哲, 岡田能幸, 小池修平, ほか: TKI

(Tyrosine kinase inhibitor) を誘因とする陰茎壊疽
性膿皮症の 1 例. 泌尿紀要 **63** : 43, 2017

(Received on October 9, 2020)
(Accepted on March 30, 2021)