

クローン病による膀胱腸瘻の2例

春日部市立病院泌尿器科 (副院長 : 根岸壮治)

川上 理, 山田 拓己, 渡辺 徹, 根岸 壮治

ENTEROVESICAL FISTULA COMPLICATING CROHN'S DISEASE: REPORT OF TWO CASES

Satoru Kawakami, Takumi Yamada,
Toru Watanabe and Takeharu Negishi

From the Department of Urology, Kasukabe Municipal Hospital

Two female patients with enterovesical fistula complicating Crohn's disease are presented. Case 1: A 40-year-old woman having a 10-year history of diarrhea presented with vesical irritability of a three months duration. Administration of antibiotics did not relieve her of the symptoms and then pneumaturia appeared. Cystoscopic examination revealed fistulous opening. Barium enema study depicted rectovesical fistula. After partial cystectomy and temporary colostomy, ileocecal lesion was shown by contrast study and resection of ileocecal segment was performed seven months later. Case 2: A 33-year-old woman presented with vesical irritability of 7 years duration and pneumaturia and fecaluria of 4 years duration. Cystoscopic examination revealed localized bullous edema but no apparent fistula. Cystography, as well as contrast studies demonstrated ileo-vesical, ileo-ascending colonic and ileo-sigmoidal fistulas. One-stage resection of diseased intestine and partial cystectomy were performed.

In both cases, pathological diagnoses of Crohn's disease was made, and postoperative course was uneventful for over 10 months.

Thirty eight cases of enterovesical fistula complicating Crohn's disease are reviewed.

(Acta Urol. Jpn. 38: 71-75, 1992)

Key words: Enterovesical fistula, Crohn's disease

緒 言

本邦では膀胱腸瘻の報告例は欧米と比較すると非常に稀であった。しかし、食生活の欧米化に伴い、消化管疾患の発生頻度が変化しつつあり、消化管の炎症性疾患による膀胱腸瘻の報告が近年急増している。

春日部市立病院においても1986年から1990年の5年間に経験した膀胱腸瘻9例の内5例が消化管の炎症性疾患に基づくものであった。このうち、クローン病による膀胱腸瘻の女子症例2例について報告するとともに、本邦報告例を集計し、その臨床病態について検討を加えた。

症 例

症例1: 40歳, 女性

主訴: 下痢, 腹部膨満感, 排尿時痛, 頻尿, 残尿感, 気尿。

既往歴: 27歳虫垂炎で虫垂切除, 39歳で流産。

現病歴: 1979年頃から下痢が続いており, 1989年4月から腹部膨満感が出現し, 5月からは排尿時痛, 頻尿, 残尿感も加わったため, 8月16日に当科を初診した。膀胱炎と診断して抗生物質の内服で経過観察したが軽快せず, 1週後には気尿が出現したため, 膀胱腸瘻の疑いにて入院となった。

身体所見: 特に異常なし

検査所見: CRP; 1.2 mg/dl 血算で赤血球数 $382 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 11.7 g/dl, Ht 36.0%と貧血を認めるが白血球数, 血小板数は異常なし。血液生化学に異常なし。尿所見 蛋白(―), 糖(―), 赤血球(+), 白血球(卅), 細菌(+), 上皮(―)。尿細菌培養: (―)ただし抗生物質投与後。

臨床経過: 膀胱鏡検査では右尿管口近くに瘻孔を認め, 糞便の流出が確認された。瘻孔周囲の粘膜に発赤と浮腫を認めた。注腸造影 (Fig. 1) で直腸から膀胱内へ造影剤の流出を認めたが, 大腸内視鏡検査では異常を認められなかった。膀胱造影では右に grade 2



Fig. 1. Barium enema X-ray film in case 1 showing contrast material passing from rectum into bladder.

の VUR を認めたが、瘻孔は造影されなかった。以上の所見より膀胱直腸瘻と診断して1989年9月27日に手術を行った。

手術所見：回腸末端部は約 20 cm にわたって強い炎症と壁の肥厚を認め、子宮底部右外側および膀胱右後壁に癒着していた。回腸と子宮を鈍的に剝離した後、膀胱内腔側より観察すると右尿管口の背側に瘻孔開口部があり、直腸 Rb 前壁までゾンドを通すことができたが、直腸内腔との交通は確認できなかった。クローン病を疑ったが回腸末端病変部の通過障害はないと判断し、膀胱部分切除、右尿管ステント留置、腸間膜リンパ節生検および人工肛門造設術を施行して閉腹した。

病理学的所見：腸間膜リンパ節の組織学的所見では、Fig. 2 に示すように、ラングハンス型巨細胞を伴ったサルコイド様非乾酪性肉芽腫が証明された。膀胱壁には異物型巨細胞を伴った強い炎症性細胞の浸潤を認めた。

術後の小腸造影にて回腸末端に壁硬化像、裂溝とcobble stone 病変を認め、直腸粘膜生検にて潰瘍形成と全層炎が証明された。以上の所見からクローン病と考え salicylazosulfapyridine の内服による保存的治療を行ったが回腸病変は改善せず、7ヵ月後の1990年4月17日に回盲部切除、回腸上行結腸吻合、人工肛門閉鎖術を施行した。

手術所見 回盲弁より 20 cm にわたって回腸漿膜

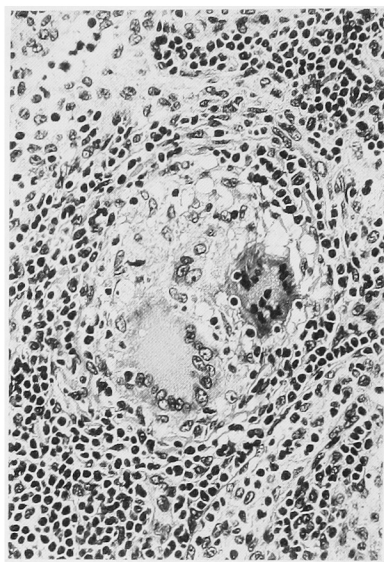


Fig. 2. Non-caseating epithelioid cell granuloma in the mesenteric lymphnode in Case 1. A multinucleated giant cell is present. (H.E. stain, $\times 400$)

の変色と壁の肥厚を認めた。病変部の 20 cm 口側から盲腸まで切除し、上行結腸と回腸を吻合し人工肛門を閉鎖した。

病理所見：切除した回腸には内腔の狭窄、壁の肥厚、縦走潰瘍を認め、組織学的にも回腸の全層炎と粘膜固有層内のサルコイド様非乾酪性肉芽腫が証明されたため、回腸および直腸クローン病による直腸膀胱と診断した。

術後経過は良好で約1ヵ月で退院し、術後10ヵ月を経た現在外来にて経過観察中である。

症例2：33歳、女性

主訴：下腹部痛、残尿感、頻尿、気尿、糞尿。

家族歴・既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：1979年1月に下腹部痛を主訴に当科を初診。膀胱炎と診断し、抗生物質の投与にて治癒した。1983年4月に残尿感と頻尿が出現し、膀胱炎として治療したが膿尿が改善しなかった。膀胱鏡検査で三角部に非上皮性と思われる腫瘍を認めたため経尿道的生検を行ったが病理診断は chronic cystitis で、外来経過観察となった。1986年頃から頻尿、気尿、糞尿が出現したが来院せず、1990年1月に再来し、膀胱腸瘻の診断にて入院となった。

身体所見：特に異常なし

検査所見：CRP；4.2 mg/dl。血算で赤血球数 $434 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、Hb 9.8 g/dl、Ht 32.8% と貧血を認めるが、白血球数と血小板数は正常で血液生化学に異常を

認めなかった。尿所見・蛋白(+)、糖(-)、白血球(卅)、赤血球(+)、細菌(+)、尿細菌培養 *E. coli* $\geq 10^5/\text{ml}$ 。

臨床経過: 膀胱鏡検査で三角部中央から右尿管口周囲に限局した粘膜の浮腫状膨隆を認め、膀胱内に糞便様の浮遊物を認めたが瘻孔は確認できなかった。膀胱造影では後壁から腸管へ向かう瘻孔が造影され右尿管に grade 2 の VUR を認めた (Fig. 3)。注腸造影では回腸末端近くに回腸 S 状結腸瘻、回腸膀胱瘻があり回腸 S 状結腸瘻からの回盲部まで糞腫状の造影剤のたまりが膀胱の頭側に認められた (Fig. 4)。小腸造影でも回腸 S 状結腸瘻と、その近くの回腸膀胱瘻が造影された。以上の所見より回腸クロウン病による回腸 S 状結腸瘻、S 状結腸膀胱瘻と診断して1990年3月27日に手術を行った。

手術所見: 回腸は上行結腸下端、膀胱後壁、S 状結腸と癒着して一塊となっており、膀胱と回腸の炎症性の癒着を剥離して、膀胱部分切除を施行。一塊となった腸管を切除して、回腸上行結腸および S 状結腸吻合を行った。

病理学的所見・肉眼的に回腸の末端部 23 cm にわたって壁の肥厚、Kerkring's fold の消失、腸間膜付着側の縦走潰瘍、cobblestone 病変を認めた。回腸と S 状結腸、上行結腸、膀胱間に瘻孔形成を認めた。回盲弁は破壊され、回盲部に腸管穿孔による focal peritonitis を認めた。組織学的には回腸に潰瘍が skip lesion として認められ、縦走潰瘍、全層性炎、炎症性ポリープの存在から回腸クロウン病およびそれによる回腸膀胱瘻、回腸 S 状結腸瘻と診断した。

術後経過は特に問題なく、術後11か月経た現在、外来にて経過観察中である。

考 察

1. クロウン病について

Crohn 病は1932年に Crohn らによって報告された原因不明の肉芽腫性炎症性病変からなる炎症性腸疾患で、消化管のどの部分にも起こりうる¹⁾。日本では欧米に比し少ないとされたが、生活の欧米化に伴って1965年以降急激に増加しており、1986年の時点で厚生省の調査研究班の報告では2,831例にのぼっている¹⁾。主として若い成人に多く、20~24歳に発症率のピークがあり、男女比は2:1と報告されている¹⁾。

根治的治療法がなく、術後再発が多いことから、薬物療法と栄養療法による保存的治療が主として行われるが、腸管狭窄、閉塞、穿孔、瘻孔、膿瘍形成などの

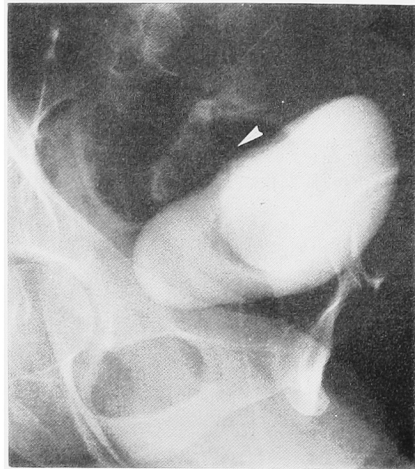


Fig. 3. Cystogram in case 2 demonstrating vesicoenteric fistula (arrow) and vesicoureteric reflux.

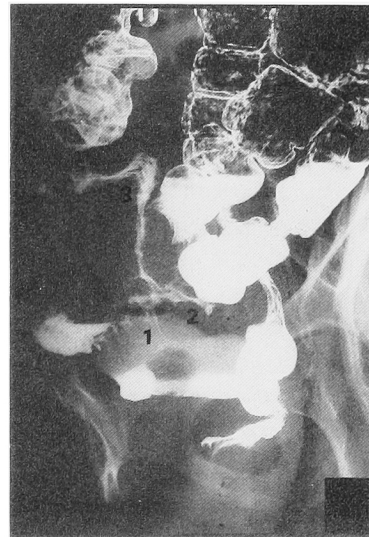


Fig. 4. Barium enema X-ray film in case 2 shows fistulous communication between ① ileum and bladder, ② ileum and sigmoid colon and ③ ileum and ascending colon. Extravasation of contrast material around terminal ileum also is evident.

合併症を有する場合、あるいは内科的治療に抵抗性である場合に外科的治療が適応となる^{1,2)}。

2. クロウン病による膀胱腸瘻

クロウン病の合併症は多彩で、腸管の炎症性病変から連続して発症する局所合併症と、全身合併症とがあ

らる。尿路系合併症では、膀胱腸瘻、膀胱周囲炎、水腎症を前者に、尿路結石症、腎アミロイドーシスを後者に分類することができる^{1,2)}。クローン病における膀胱腸瘻の合併率について、Morgolin らは欧米の主な報告例を集計し、3,497例中138例(3.9%)の頻度で、非観血的治療の長期化により最近の報告では頻度が高くなりつつあるとしている³⁾。本邦では488例中8例(1.6%)との報告がある⁴⁾。

3. 本邦報告例

今回われわれの集計しえた本邦の膀胱腸瘻合併例は自験例を含めて38例であった⁵⁻¹⁰⁾。Fig. 5に性別の年齢分布を示した。発症年齢は16歳から57歳、平均28.8歳である。クローン病自体の好発年齢に一致して20歳台にピークがあり、これは中高年に多い結腸憩室炎による結腸膀胱瘻と好対照をなしている。自験例は2例とも女子であったが、本邦報告例38例では男子32例女子5例(男女比6.4:1)と男性に多い。Kyle らは欧米の報告例の平均は35歳、男女比は約3:1としている¹¹⁾。Margolin ら³⁾、Kyle ら¹²⁾は、女子に膀胱腸瘻が少ないのは、クローン病の好発部位である回腸末端と膀胱の間に子宮が介在するためであろうと述べている。

Table 1に、症状、瘻孔形成部分および治療についてまとめた。まず症状では、腹痛や下痢といったクローン病による消化器症状に加えて、尿路系の症状が95%にみられ、特に気尿・糞尿が84%と高率である点の特徴である。自験例も2例ともに気尿を呈したが、気尿が出現する前に長期間にわたって消化器症状あるいは難治性の尿路感染症が認められた。Kyle らの10例の報告では、最初の症状から瘻孔の発生までに平均5.5年を要しており、膀胱腸瘻が初発症状であった症例はなかった¹²⁾。

瘻孔の部位としては回腸膀胱瘻が21例と半数以上を占めるが、結腸膀胱瘻、直腸膀胱瘻も少なくなく、全消化管に発症しうる本疾患の性格上、瘻孔形成部位も多彩である(Table 1)。自験例では症例2は回腸膀胱瘻であったが、症例1は直腸の skip lesion からの瘻孔形成と考えられた。

瘻孔を閉鎖させる点に関しては保存的治療は効果がなく、外科療法の適応である^{1,2)}。本邦報告例においても記載の明らかな35例中で保存的治療により瘻孔が閉鎖したのは4例のみで、他の31例は手術が施行されており、病変の存在する腸管の切除と膀胱部分切除を併せて行った症例が最も多い。症例1においては、2期的手術となったが、術前の消化管病変の検索が不十分であったことが反省点である。本症は非連続性病変を

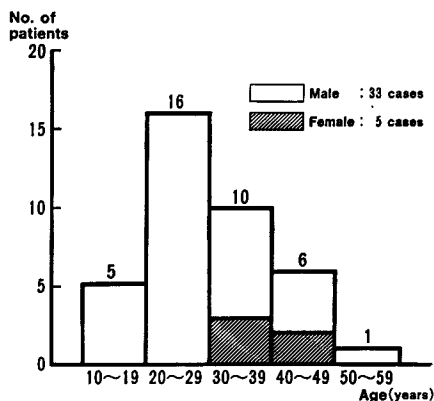


Fig. 5. Age distribution of 38 cases of enterovesical fistula complicating Crohn's disease reported in Japanese literature.

Table 1. Summary of 38 cases of enterovesical fistula complicating Crohn's disease reported in Japanese literature.

Symptoms & Signs		
Urological symptoms & signs		(95%)
Pneumaturia, fecaluria		84%
Vesical irritability		50%
Cloudy urine		16%
Hematuria		16%
Other symptoms & signs		(50%)
Abdominal pain		39%
Diarrhea		21%
Fever		8%
Other GI tract symptoms		8%
Origin of Fistula		
Ileum	21 cases	(57%)
Colon	14 cases	(38%)
Rectum	7 cases	(19%)
Details are not mentioned		5 cases
Treatment		
Resection of diseased intestine	31 cases	
with partial cystectomy	(25 cases)	
with closure of the bladder	(1 cases)	
Conservative (IVH)	1 case	
Details are not mentioned	5 cases	

呈することが多く、術前の十分な検索が大切であるが、難治性で術後再発の危険性が高く、術後も厳重な経過観察が必要である^{1,2)}。

本邦報告例38例の報告年度をみると、1960年代2例、1970年代4例、1980~1984年に11例、1985年以降21例と近年急激な増加を示しており、若年者で長期の消化管症状を伴った反復性の尿路感染症患者におい

ては、本症を念頭において消化管検査を含めた鑑別診断が必要となる。若年者に好発する点からも、本疾患の病因究明と根治療法の早急な確立が必要とされる。

結 語

クロhn病による膀胱腸瘻の2例を報告した。本邦での報告例38例を集計し本症の臨床病態について検討を加えた。

本論文の内容の一部を第42回日本泌尿器科学会西日本総会(1990年11月, 沖縄)にて発表した。

文 献

- 1) 宇都宮利善, 横田 暉: 炎症性腸疾患の概念・疫学・成因. 消化器病セミナー31, 炎症性腸疾患の臨床. 白鳥常男編. 第1版, pp. 20-31, へるす出版, 東京, 1988
- 2) 樋渡信夫, 豊田隆謙: Crohn 病の合併症. 外科 52: 350-357, 1990
- 3) Margolin ML and Korelitz BI: Management of bladder fistulas in Crohn's disease. J Clin Gastroenterol 11: 399-402, 1989
- 4) 笹川 力, 木村 明 アンケート調査より見たわが国のクロhn病の治療と予後. 厚生省特定疾患炎症性腸管障害調査研銭班, 昭和57年度業績集. pp. 232-239, 1983
- 5) 松宮清美, 三宅 修, 細見昌弘, ほか: クロhn病による水腎症の1例. 泌尿紀要 35: 863-869, 1989
- 6) 桐田孝史, 小坂博美, 高松三郎, ほか: Crohn 病による膀胱腸瘻の1例. 外科 51: 180-185, 1989
- 7) 水永光博, 内田亮彦, 朴 英哲, ほか: クロhn病による回腸膀胱瘻の1例. 泌尿紀要 35: 1223-1227, 1989
- 8) セレスタ GR, 野島道生, 市川靖二, ほか: Crohn 病による膀胱回腸瘻の1例. 泌尿紀要 35: 1935-1937, 1989
- 9) 加瀬浩史, 永島弘登志, 渡辺 徹, ほか: 膀胱腸瘻にて発見されたクロhn病の2例. 日泌尿会誌 79: 2069, 1988
- 10) 児島真一, 山田拓己, 東 四雄, ほか: 膀胱腸瘻の3例. 日泌尿会誌 76: 1242, 1986
- 11) Kyle J and Murray CM: Ileovesical fistula in Crohn's disease. Surgery 66: 497-501, 1969
- 12) Kyle J: Urinary complication of Crohn's disease. World J Surg 4: 153-160, 1980

(Received on March 13, 1991)
(Accepted on May 17, 1991)