

Fournier 壊疽との鑑別に難渋した陰茎壊疽性膿皮症の 1 例

田口 真¹, 井上 貴昭¹, 西田 晃久¹川端 和史¹, 川喜多繁誠¹, 六車 光英¹室田 卓之¹, 木下 秀文², 松田 公志²¹関西医科大学附属滝井病院腎泌尿器外科, ²関西医科大学附属枚方病院腎泌尿器外科A CASE OF PYODERMA GANGRENOSUM OF THE PENIS
DIFFICULT TO DISTINGUISH FROM FOURNIER GANGRENEMakoto TAGUCHI¹, Takaaki INOUE¹, Teruhisa NISHIDA¹,
Takashi KAWABATA¹, Shigenari KAWAKITA¹, Kouei MUGURUMA¹,
Takashi MUROTA¹, Hidefumi KINOSHITA² and Tadashi MATSUDA²¹The Department of Urology, Kansai Medical University, Takii Hospital²The Department of Urology, Kansai Medical University, Hirakata Hospital

Here, we report a case of pyoderma gangrenosum of the penis which was difficult to distinguish from Fournier gangrene. The patient was a 54-year-old male who was aware of redness and swelling of the glans penis for 1 month prior to a consultation at our department. Although he was diagnosed with herpes and treated at a nearby hospital, his symptoms did not improve. Subsequently, the patient visited our department following the onset of pain and fever. During his initial consultation, he had a fever of 39°C as well as redness and swelling of the glans penis with partial spontaneous purulent discharge. His blood test revealed an elevated white blood cell count (20,000/ μ l) and C-reactive protein (19.1 mg/dl). Because Fournier gangrene was suspected, administration of broad-spectrum antimicrobial agents was initiated but proved to be ineffective. An abscess (2 cm in diameter) was also noted in the umbilical region. Enterococcus faecalis was detected by the bacterial culture; and therefore, Fournier gangrene was diagnosed. A partial penectomy was performed to control the infection. Pathological findings showed only non-specific inflammation; however, fever persisted postoperatively and blood test results showed no improvement. Furthermore, new abscess lesions emerged on the right heel and back. Because the re-performed abscess bacterial culture test result was negative, pyoderma gangrenosum was suspected, and he was started on oral prednisolone (20 mg/day). On the following day, his fever subsided and his blood test results also showed improvement. A final diagnosis of pyoderma gangrenosum was ultimately made.

(Hinyokika Kiyo 61 : 459-463, 2015)

Key words : Penile, Fournier gangrene, Pyoderma gangrenosum

緒 言

壊疽性膿皮症は非細菌性の壊死性潰瘍を形成する原因不明の疾患であり, 1930年に Brunsting らによって初めて報告された¹⁾. 特徴的な病理学的所見や検査所見はなく, 臨床像と除外診断で本疾患と診断する²⁾. 一般的には下腿伸側に好発するとされており陰茎への発生は非常に稀である³⁾. 今回, われわれは陰茎に発生した Fournier 壊疽との鑑別に難渋した陰茎壊疽性膿皮症を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する.

症 例

患 者 : 54歳, 男性

主 訴 : 発熱, 陰茎痛

既往歴・家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 当科受診 1 カ月前より亀頭部の発赤・腫脹を自覚していた. 近医にてヘルペスの診断で加療していたが改善を認めなかった. 受診 2 日前より発熱と陰茎痛を伴ってきたため2014年 9 月当科受診となった.

初診時現症 : 身長 166 cm, 体重 58 kg, 体温 39.0°C, 血圧 127/84 mmHg, 脈拍103回/分. 亀頭部は発赤・腫脹しており一部自壊・排膿を認めた (Fig. 1A). 包皮は腫脹していたが鼠径部および陰囊には異常を認めなかった. 臍下に 1 cm 大の発赤を認める以外その他異常所見なし.

初診時検査所見 : 血算・生化学検査 ; PT-INR 1.12, FDP 2.4 μ g/ml, WBC $200 \times 10^2 / \mu$ l, RBC $486 \times 10^4 / \mu$ l, Hb 12.1 g/dl, Plt $60.4 \times 10^4 / \mu$ l, HbA1c 5.9%, Na 137 mEq/l, K 3.5 mEq/l, Cl 101 mEq/l, BUN 21 mg/dl, Cr 1.09 mg/dl, TP 7.9 g/dl, Alb 2.9 g/dl, AST 27 U/l, ALT 33 U/l, LDH 106 U/l, CK

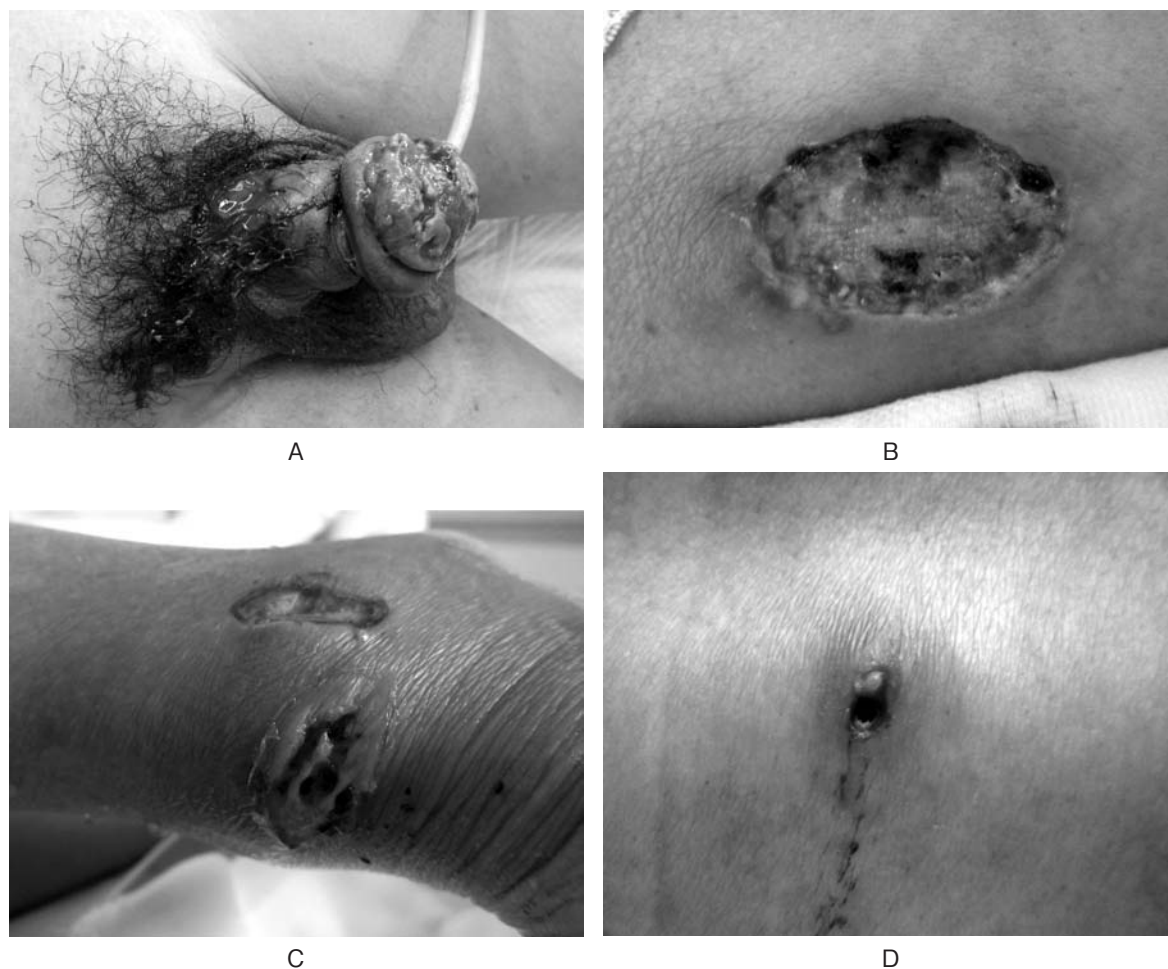


Fig. 1. A: Photograph of the penis. B: Photograph of the lower abdomen. C: Photograph of the right heel. D: Photograph of the back.

20 U/l, CRP 19.1 mg/dl, PCT 陰性. 尿沈渣; RBC 59/HPF, WBC 218/HPF, 細菌 (-). 腫瘍マーカー; CEA 1.8 ng/ml, SCC 0.4 ng/ml. 血液感染症; HCV

抗体 (-), HBV 抗原 (-), HIV (-), STS (-). 陰茎創部からの膿瘍の細菌検査; PCR 検査にてクラミジア (-), 淋菌 (-) であり, Gram 染色では鏡

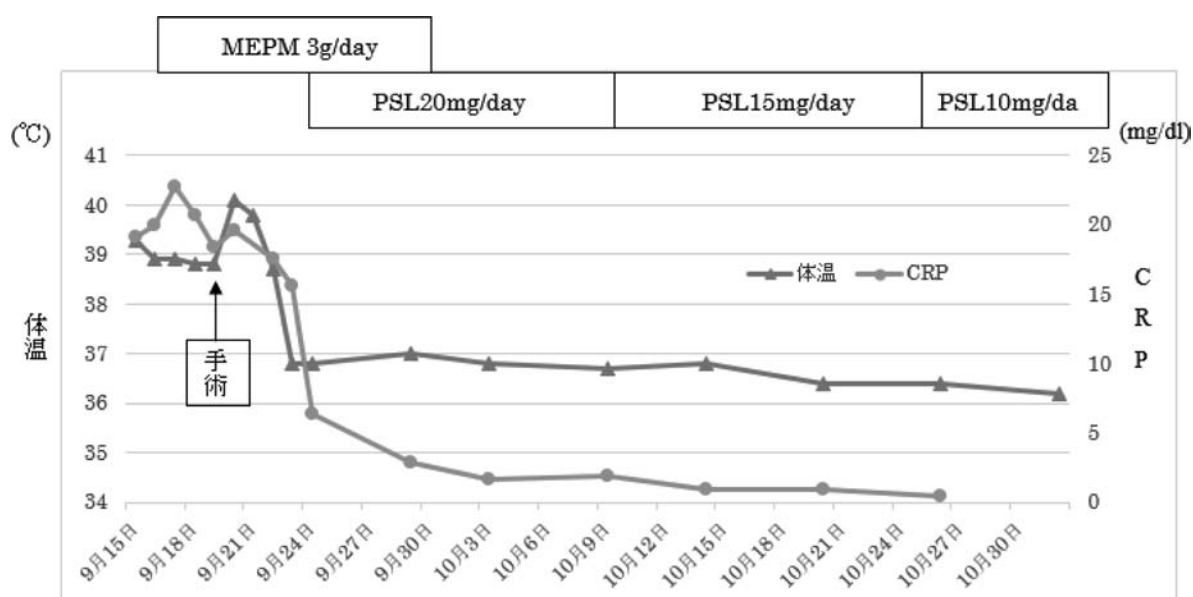


Fig. 2. Clinical course and laboratory data.

検にて細菌を認めなかったが、細菌培養にて *Enterococcus faecalis* (1+) 検出。

入院後経過：陰茎亀頭部に発症した Fournier 壊疽と診断し、当科緊急入院となった。入院後より meropenem (MEPM) (3 g/day) の投与を開始したが解熱せず疼痛も増強、採血上白血球数や CRP も改善を認めなかった (Fig. 2)。また、臍下の発赤が徐々に膿疱状に増大し、切開を行うと排膿を認めた (Fig. 1B)。入院後2日目、MRI を撮像し、炎症は陰茎皮下のみで白膜まで波及していないと判断した (Fig. 3)。その後も発熱が続き改善傾向が認められないので抗菌薬による感染コントロールは困難と判断し、入院後4日目に感染巣および壊死組織を切除する陰茎部分切除術を施行した。

手術所見：炎症は陰茎海綿体まで波及しており、尿道を可及的に温存しつつ亀頭部を切除し、陰茎海綿体を部分切除した。また、陰茎の根部にも壊死組織が波及していたため同部位に切開を加えて感染巣を除去した。精巣および陰嚢は正常であった。創部を開放創と

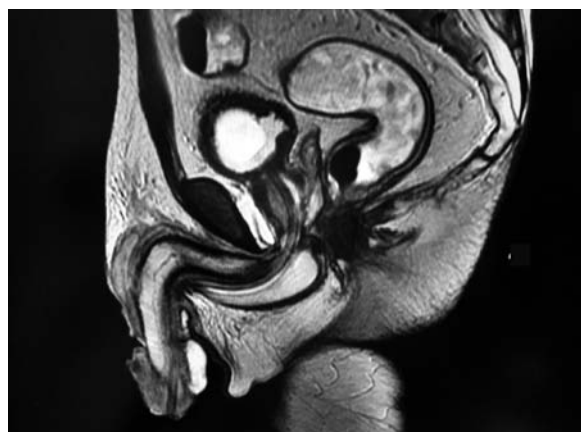


Fig. 3. Magnetic resonance imaging (T2-weighted image) showing the penis. The arrow shows inflammation to the subcutaneous area.



Fig. 4. Photograph of the penis after the debridement.

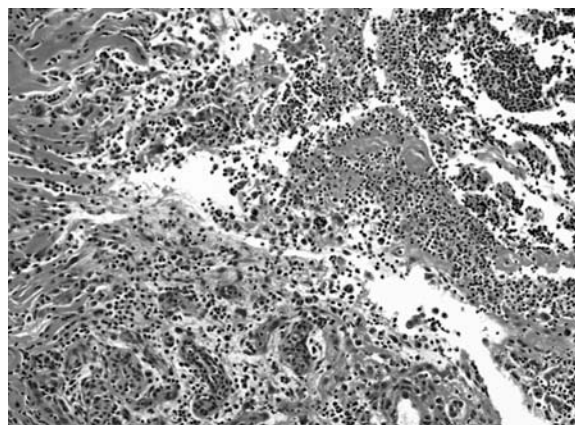


Fig. 5. Histopathology of the glans penis showing non-specific inflammation findings.

して手術を終了した (Fig. 4)。

病理学的所見：皮下に好中球や組織球などを中心とした炎症細胞を多数認めた。悪性所見はなく非特異的炎症所見を認めるのみであった (Fig. 5)。

術後経過：術後も発熱や疼痛が続き、採血上白血球数や CRP の高値は持続した。術後3日目、右下肢および背部に新病変が出現し、切開を行うと排膿を認めた (Fig. 1C, D)。再度陰茎、右下肢、背部の膿瘍を Gram 染色するとすべて細菌が陰性であったため、無菌性膿瘍と判断し、壊疽性膿皮症を疑いプレドニゾン 20 mg/日で開始した。翌日より体温は正常化し、CRP も徐々に低下した。その後潰瘍性病変は改善し、臍下、背部、右下肢の病変も上皮化した。部分切除を行った陰茎断端からの排膿もなくなり肉芽の形成を認めた。以上から壊疽性膿皮症と診断した。壊疽性膿皮症の再燃に注意しつつプレドニゾンを漸減し、プレドニゾン 10 mg/日で維持可能となったため術後40日目に退院した。後日温存した尿道と左鼠径部の有茎皮弁を使用して陰茎再建術を施行した。

考 察

壊疽性膿皮症は非細菌性の膿疱、潰瘍を形成しつつ、急速に拡大する好中球性皮膚症の1つである。特異的な臨床検査所見はなく、皮疹の性状と他の疾患の除外によって診断する。病理学的所見も非特異的な炎症所見を認めるのみであるが、生検は悪性腫瘍や他の鑑別疾患を除外するためには有用な検査である⁴⁾。好発年齢は20～50歳代であり女性に多い。好発部位は下腿伸側であり、陰茎発症は本邦では自験例で17例目である (Table 1)⁵⁻¹²⁾。本症は関節リウマチ、炎症性腸疾患、血液系悪性腫瘍などの全身疾患に合併することが多い。自験例では全身検索した限りでは併存疾患はなかった。外科的な処置は病変の増悪を招くため禁忌とされており、抗菌薬投与も無効である。治療はステロイド投与が著効する⁴⁾。一般的にはプレドニゾン

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

Case no	Age	Underlying disease	Satellite lesions	Bacterial culture	Symptoms fever	Pain	Inflammatory surgery	Treatment surgery	Drug
①	89	Acute myeloid leukemia	Right leg	(-)	(-)	(-)	High	(-)	Steroid
②	66	Ulcerative colitis	(-)	(-)	(-)	(+)	(-)	(-)	Steroid Cyclophosphamide Minocycline
③	46	(-)	(-)	(-)	(-)	(+)	(-)	(-)	Steroid
④	64	Hepatitis B	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	Circumcision (no effect)	Steroid
⑤	57	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	Steroid Cyclosporine Minocycline
⑥	70	Rheumatoid arthritis	Inguinal region	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	Steroid Tacrolimus
⑦	68	(-)	(-)	(+)	(-)	(+)	High	(-)	Steroid Minocycline
⑧	50	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	Steroid
⑨	77	Prostate cancer	(-)	(-)	(+)	(+)	High	Debridement (no effect)	Steroid
⑩	77	Lung cancer	(-)	(-)	(-)	(+)	(-)	(-)	Steroid Cyclosporine
⑪	46	Behcet's disease	Both legs	(-)	(-)	(-)	(-)	Circumcision (no effect)	Steroid
⑫	32	Ulcerative colitis	Right forearm Lumber	(+)	(+)	(+)	High	(-)	Steroid
⑬	38	Aortitis syndrome	(-)	(-)	(-)	(+)	(-)	(-)	Steroid
⑭	60	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	(-)	Steroid
⑮	39	Ulcerative colitis	Left femoral	(-)	(-)	(+)	(-)	Circumcision (no effect)	Steroid
⑯	20	Ulcerative colitis	(-)	(-)	(+)	(+)	(-)	(-)	Steroid
⑰ Our case	54	(-)	Under the navel Back Right heel	(-)	(+)	(+)	High	Partial penectomy (no effect)	Steroid

で初期投与量を 40～100 mg で開始し、以後再燃に注意しつつ漸減していくことが多い⁴⁾。自験例でも陰茎部分切除術を施行したが効果はなく、ステロイド投与が著効した。

一方、Fournier 壊疽は1883年に Fournier によって初めて報告された¹³⁾。現在では陰囊、鼠径部、肛門周囲などに突然発症し、急速に進行する細菌性の外陰部壊死性筋膜炎として知られている。若年男子のみの報告が Fournier によってなされているが、近年の報告では若年者から高齢者まで報告されており、好発年齢は中高年とされている¹⁴⁾。死亡率は13～52%と予後不良な疾患であり^{15,16)}、早期の診断および集学的治療が重要であるとされている。何らかの合併症のある症例に発症しやすいことが知られており、曾我らの報告によると、1990年から2006年までの本邦133例中110例 (82.7%) に基礎疾患や臥床状態など何らかの合併症があった。中でも糖尿病が最多で36.8%であり、次いでアルコール過剰摂取と悪性疾患がそれぞれ11.3%であった。また、誘因となる原因疾患や処置が明らかであったのは61.7%であり、直腸肛門疾患が最多で

30.8%、次いで泌尿器科疾患が12.8%であった。起因菌に関しては、133例中110例 (82.7%) で確認されており、最多がブドウ球菌 (33.6%) であり、次いで大腸菌 (30.0%)、腸球菌 (28.2%)、レンサ球菌 (28.2%)、バクテロイデス (27.8%) の順で検出されていた¹⁷⁾。以上より Fournier 壊疽は何らかの基礎疾患や合併症を持ち、何らかの誘因によって発症することが多いと思われる。自験例では基礎疾患や合併症、誘因などなく発症しており、Fournier 壊疽と診断するには非典型的であったと考えられる。また、Fournier 壊疽は連続性の病変だが壊疽性膿皮症は全身疾患でありサテライト病巣が存在することが多く、Fournier 壊疽と壊疽性膿皮症の鑑別点としてサテライト病巣の有無が挙げられる¹⁸⁾。本症では初診時に臍下の病変は発赤のみであったが手術前には潰瘍性病変となっており、その点において鑑別できた可能性がある。細菌培養検査も鑑別に有用であり、細菌培養が陰性であれば無菌性膿瘍として壊疽性膿皮症を考慮する必要がある。ただし表面に付着した膿苔に細菌が二次的に感染を生じる可能性もあり、注意が必要である。本症では細菌検査にて

培養検査が陽性であり初期に Fournier 壊疽と判断したが, 実際は二次的な感染であったものと考えられる. 白石らは壊疽性膿皮症の加療中に Fournier 壊疽を合併した症例を報告しており, 壊疽性膿皮症による表皮の欠損部位からの細菌侵入およびステロイド投与中による易感染状態が関係していたと述べており, 治療中も感染に対して十分注意すべきであると考えられる¹⁹⁾.

両疾患の鑑別は臨床所見が似ているため容易ではない. 本邦における陰茎発症の壊疽性膿皮症16例の診断過程の多くは, 抗菌薬投与や外科的処置でも改善しないため皮膚科を受診し, 臨床症状や生検による病理学的検査, および細菌培養検査にて診断されており, 診断に至るまでに難渋している. 両疾患とも排膿や壊死を伴った潰瘍性病変を形成し, 発熱や疼痛を伴うことがある. 壊疽性膿皮症は無菌性であり Fournier 壊疽は細菌性であるため細菌検査にて鑑別が可能と考えられるが, 細菌培養が陽性であっても細菌のコンタミネーションや二次感染について考慮しなければならない. さらに, どちらも急速に病変が進行するため早期の鑑別が必要になる^{15,16)}. なぜなら Fournier 壊疽の場合, 救命のために早期のデブリードメントが必要になることが少なくないからである. 広域抗菌薬の使用および感染巣に対する外科的処置が無効な場合, 稀な疾患ではあるが本疾患を考慮する必要があると考えられる. さらに, Fournier 壊疽を発症するような基礎疾患がなく, 加えて何の誘因もないにもかかわらず自験例のような潰瘍性病変を生じた場合, 全身をサテライト病巣がないか検索し, もし疑わしい病変があれば本疾患を疑ってステロイド投与を考慮する必要があると考えられる.

結 語

陰茎に初発し, Fournier 壊疽との鑑別に難渋した陰茎壊疽性膿皮症を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告した. 両者の治療方法は相対するものであるためその鑑別が重要である.

文 献

- 1) Brunsting LA, Goeckerman WH and O'Leary PA: Pyoderma gangrenosum: clinical and experimental observation in five cases occurring in adults. Arch Dermatol Syph **22**: 655-680, 1930
- 2) Callen JP: Pyoderma gangrenosum and related disorders. Adv Dermatol **4**: 51-70, 1989
- 3) Farrell AM, Black MM, Bracka A, et al.: Pyoderma gangrenosum of the penis. Br J Dermatol **138**: 337-340, 1998
- 4) Lee DK, Hinshaw M, Cripps D, et al.: Pyoderma gangrenosum of the penis. J Urol **170**: 185-186, 2003
- 5) Satoh M and Yamamoto T: Genital phyoderma gangrenosum: report of two cases and published work review of Japanese cases. J Dermatol **40**: 840-843, 2013
- 6) 緋田哲也, 大島三佳, 久保宜明, ほか: 陰茎に生じた壊疽性膿皮症の1例. 西日皮 **75**: 377, 2013
- 7) 島村智江, 西 薫, 飯塚 一, 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
- 8) 永尾 淳, 山本 豊, 石名 航, 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
- 9) 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
- 10) 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, 1999
- 11) 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
- 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) Fournier JA: Gangrene foundroyante de la verge. Semin Med **3**: 345-348, 1883
- 14) 前田耕太郎, 鎌野俊彰, 遠藤智美, ほか: Fournier 症候群の治療. 外科治療 **96**: 156-160, 2007
- 15) Benizri P, Fabiani P, Miliori G, et al.: Gangrene of the perineum. Urology **47**: 935-939, 1996
- 16) 板倉宏尚, 井上滋彦, 柳沢良三, ほか: Fournier's gangrene の1例. 泌尿器外科 **4**: 637-640, 1991
- 17) 曾我直弘, 宮崎 要, 金木昌弘, ほか: 肛門周囲膿瘍より発症し広範に進展した Fournier's gangrene の1例. 東女医大誌 **76**: 234-238, 2006
- 18) Baskin LS, Dixon C, Stoller ML, et al.: Pyoderma gangrenosum presenting as Fournier's gangrene. J Urol **144**: 984-986, 1990
- 19) 白石信之, 板見 智, 瀬口俊一郎, ほか: 壊疽性膿皮症様皮疹を伴った Fournier's Gangrene. 西日皮 **48**: 660-664, 1986

(Received on February 10, 2015)

(Accepted on July 13, 2015)