

保存的治療が奏効したクローン病による膀胱腸瘻の1例

千葉大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 島崎 淳教授)

鈴木 啓悦, 山西 友典, 井坂 茂夫

安田 耕作, 島崎 淳

千葉大学医学部第1外科学教室 (主任: 奥井勝二教授)

更 科 広 実

VESICOENTERIC FISTULA COMPLICATING CROHN'S DISEASE, RESPONDED TO MEDICAL TREATMENT: A CASE REPORT

Hiroyoshi Suzuki, Tomonori Yamanishi, Shigeo Isaka,
Kousaku Yasuda and Jun Shimazaki

From the Department of Urology, Chiba University School of Medicine

Hiromi Sarashina

From the 1st Department of Surgery, Chiba University School of Medicine

A 20-year-old man was admitted on February 2, 1990 with the chief complaint of pollakisuria, miction pain and macrohematuria. Urinalysis revealed numerous leukocytes and *Enterobacter* was identified by urine culture. Cystoscopy revealed an edematous region. Contrast film of small intestines demonstrated vesicoileal fistula. Judging from these and the radiographic findings, we made the diagnosis of vesicoileal fistula with Crohn's disease.

After medical therapy between February 22 and May 25, urinalysis became normal and we assumed that the fistula had closed. Now, it is about a year since the therapy began, the patient remains well, without urinary and enteric symptoms. Cystoscopy and urinalysis did not reveal recurrence of the fistula.

Despite previous reports that vesicoenteric fistulas complicating Crohn's disease require surgical treatment, this case responded to medication, and required no surgical treatment. This case is a reminder of the importance of the principle of therapy.

(Acta Urol. Jpn. 38: 337-341, 1992)

Key words: Vesicoenteric fistula, Crohn's disease

緒 言

クローン病は若年成人に好発する難治性疾患であり, 合併症として瘻孔形成がよく知られる¹⁾が, 膀胱腸瘻を形成することは稀である。われわれは最近20歳男性にみられたクローン病による膀胱回腸瘻を保存的に治療した1例を経験したので, 本邦報告例に若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 20歳, 男性

主訴: 頻尿, 排尿時痛, 肉眼的血尿

家族歴: 特記すべき事項なし

既往歴: 4歳時, 喘息。12歳時に虫垂炎の手術。16歳時, 胃炎。

現病歴: 1989年9月より頻尿, 残尿感, 下痢が出現した。同年10月より肉眼的血尿, 排尿時痛も認めたため近医受診し, 抗生剤を投与されるも症状は改善しなかった。1990年1月に他院にて膀胱鏡所見等より膀胱腫瘍が疑われ経尿道的膀胱生検を施行された。病理組織診断の結果は慢性膀胱炎であった。同年1月22日当科を紹介され受診し, 2月2日, 膀胱鏡所見から膀胱腸瘻が疑われたため精査目的に入院となった。

入院時現症: 身長 168 cm, 体重 48.5 kg。顔面蒼白,

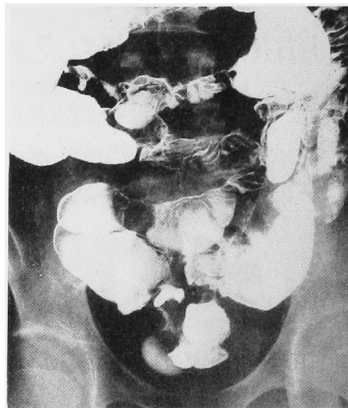


Fig. 1. Contrast film of small intestines demonstrated vesicoileal fistula and features of Crohn's disease.

栄養状態不良で 39°C 台の発熱があった。下腹部圧痛のほかは特に理学的所見なく、腹部腫瘍、肛門部病変ともに認めなかった。

入院時検査成績：血液一般では、WBC 6,300/mm³, RBC 3.86×10⁶/mm³, Hb 9.4 g/dl, Hct 30.7%, Plt 455×10³/mm³ と貧血の所見および血小板数の増加を認めた。血液生化学では TP 5.4 g/dl, Alb 2.4 g/dl と低蛋白血症を呈した。CRP 16.3 mg/dl, 血沈 46 mm/hr と共に亢進していた。尿沈渣は RBC 多数/hpf, WBC 多数/hpf であり、尿培養で Enterobacter 10⁵/ml を認めた。尿細胞診は陰性であった。

膀胱鏡所見 膀胱後壁に直径約 3cm の表面浮腫状の隆起性病変を認めたが、瘻孔の存在は明らかではなかった。

X線検査所見：排泄性尿路造影では上部尿路に異常所見は認められなかった。膀胱造影でも瘻孔は造影されずとくに異常は見られなかった。小腸二重造影では、回腸の広範囲にわたって縦走潰瘍、敷石状病変および全周性狭窄などの所見が非連続性に認められ、また膀胱への瘻孔が確認された (Fig. 1)。

以上の所見より、クローン病診断基準²⁾ (Table 1) に対照しクローン病による膀胱回腸瘻と診断した。

経過：2月22日より絶飲食、中心静脈栄養、サラゾピリン坐薬の投与、経腸栄養等の保存的治療を行った。体重の増加、尿所見の改善、膀胱刺激症状の消失および CRP、血沈の改善が見られ、尿所見は陰性化した。以上により膀胱腸瘻は閉鎖したと判断し、5月25日退院した (Table 2)。治療開始後約1年を経過した現在、体重 53 kg で経腸栄養とサラゾピリン坐薬の投与を行っている。膀胱鏡所見にて初診時と同様の部位の粘膜の浮腫状病変の縮小を認め、尿所見でも膿尿

Table 1. Crohn 病の診断基準 (案)

- 1) 非連続性または区域性病変
- 2) cobblestone appearance または縦走潰瘍
- 3) 全層性炎症性病変 (腫瘍または狭窄)
- 4) サルコイド様非乾酪性肉芽腫
- 5) 裂溝または瘻孔
- 6) 肛門部病変 (難治性潰瘍, 非定型的痔瘻または裂肛)

上記1), 2), 3)を有するものを疑診、さらに4), 5), 6)のうちのひとつが加われば確診とする。しかし、4)がある場合には、1), 2), 3)のうちの2つがあれば確診としてよい。ただし、腸結核、潰瘍性大腸炎、虚血性(大)腸炎、放射線照射性(大)腸炎、腸型バーチエット、単純性(非特異性)腸潰瘍、“非特異性多発性小腸潰瘍症”、および急性回腸末端炎は除外されているものとする。

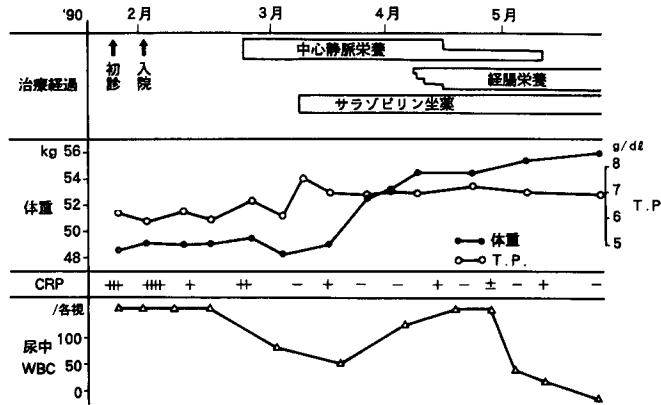
は消失しており、症状や一般検査所見でも膀胱腸瘻の再燃を疑わせる所見はない。

考 察

クローン病は1932年にCrohnらによって報告された回腸末端に好発する慢性肉芽腫性炎症性疾患である³⁾。欧米においては人口10万人につき2～4人の年間発生率で、本邦においてはそれに比して少ないとされてきた。しかし近年本邦でも報告例の増加が見られ¹⁾、今後泌尿器科領域の合併症もしだいに増加するものと考えられる。

組織学的には腸管壁の全層性炎症を示すが、漿膜までの炎症の波及により腸管を含む他臓器との瘻孔形成をきたす可能性がある¹⁾。瘻孔形成は本疾患の半数に見られるが⁴⁾、膀胱との間の瘻孔は稀であり Kyle ら⁵⁾の報告ではクローン病患者の2.4%に膀胱腸瘻の合併が見られたとしている。諸家の報告でも2～8%程度とするものが多い⁶⁻⁹⁾。クローン病の尿路系の合併症

Table 2. Clinical course in the hospital



としては他に膀胱炎, 膀胱周囲膿瘍, 水腎症, 尿路結石が報告されている⁵⁾.

クローン病による膀胱腸瘻の本邦報告例は, 文献的に検索しえたかぎり自験例を含め全 29 例である (Table 3). 男女比は, クローン病自体に有意の男女差がないとされる¹⁾ のに対して男性 26 例: 女性 3 例で圧倒的に男性に多く, 年齢は平均 27.9 歳で若年者に多い. 男性に多い理由として Smith ら¹⁰⁾ は女性には炎症の波及を防ぐ役割を演じる子宮があるという解剖学的理由をあげている. また Kyle ら⁵⁾ は男性のほうが症状が悪化しやすい傾向にあるからだとして述べている. 症状は下痢, 腹痛等の腸管病変由来の消化器症状と, 排尿時痛, 残尿感等の膀胱腸瘻に由来する下部尿路刺激症状と血尿, 気尿, 膿尿等があり, 大多数の症例においてその両者が認められる. 従って, 若年成人において尿路症状とともに消化器症状を訴える場合には本疾患を念頭に入れて検査する必要があると考えられる.

一般に膀胱腸瘻の基礎疾患としては結腸憩室炎が最も多く, クローン病は 5~12% を占めるとされる¹¹⁻¹³⁾. 本邦報告例でのクローン病の膀胱腸瘻の部位はクローン病自体の好発部位に一致した回腸が 20 例 (69.0%) と最も多かった. Couris ら¹⁴⁾ は, 膀胱腸瘻のうちで回腸膀胱瘻の占める割合は 8.5% であり, そのうち 30~40% がクローン病によるものであったと報告した.

膀胱腸瘻の診断は排泄性尿路造影, 膀胱造影, 膀胱鏡, 小腸造影, 注腸造影, CT scan などによるが, 膀胱鏡で直接的に瘻孔や粘膜の炎症所見を観察することが最も有効で 50% に見られたと報告された^{15, 16)}. 一方, 膀胱造影は膀胱が伸展性臓器であり, そのバルブ様作用により瘻孔の証明には不適切であるとも報告さ

れた¹⁷⁾. 本例の様に消化管造影にて瘻孔が証明される頻度は 12.5%~21% といわれ, 膀胱鏡では 50% に証明されるのに比べ有用とはいえない^{7, 12)}. 最終的には各検査を組合せ診断する必要があるといえよう.

本邦報告例のうち自験例を除いた過去の 28 例は全例手術が施行された. 術式としては瘻孔部を含む病変腸管の切除と膀胱部分切除を併せて行った例が多かった. そのうち正しく術前診断されなかったものが 12 例で, 膀胱腫瘍や尿管管腫瘍と誤診されていた症例が多かった. 診断後すぐに手術をされたものが 14 例で, 診断後それぞれ 83 日間と 3 カ月間の保存的治療を試みるも瘻孔が完全に閉鎖せずに手術に踏み切ったものが 2 例 (No. 13, 19) であった. すなわち, 本邦例にて保存的治療により膀胱腸瘻が閉鎖し, 手術せずに経過観察しえているのは自験例のみである.

クローン病は, 最近サラゾピリン, ステロイドの投与や経腸栄養, 中心静脈栄養などの保存的治療が中心として行われている¹⁾, 一方, 以前より膀胱腸瘻を伴った場合には, 重症例と考えられ保存的治療にて永久的に瘻孔を閉鎖させることは困難であり, 尿路感染が続くことの悪影響を考慮して手術を施行すべきと考えられてきた^{9-18, 19)}. しかし Gorcey ら²⁰⁾ は本疾患による腎機能の低下はなく, むしろ手術療法はクローン病自体の術後再発率の高さを考慮すると適切ではないと述べ, さらに手術療法はクローン病による他の合併症によって必要になった時のみ施行すべきだと主張している. Glass ら²¹⁾ や Morgolin ら²²⁾ も保存的治療にて膀胱腸瘻の閉鎖に成功し長期観察しえている例を報告した.

近年, 栄養療法として home elemental enteral hyperalimentation (HEEH) 一夜間の self-intuba-

Table 3. Vesicoenteric fistulas complicating Crohn's disease in the Japanese literature

No.	報告者	年代	年齢	性	主 訴	部 位	術前 診断	手 術
1	上 垣	1965	57	男	回盲部痛	回 腸	×	回腸切除
2	上 垣	1965	34	男	回盲部痛・腫瘍, 排尿時痛, 血尿	盲 腸	×	回盲部切除
3	緒 方	1974	23	男	排尿時痛, 発熱	回 腸	×	回腸膀胱間の癒着剝離
4	有 門	1975	27	男	膿尿, 血尿, 気尿	回 腸	○	回腸切除, 膀胱部分切除
5	相 川	1978	41	男	排尿時痛, 血尿, 膿尿, 頻尿	S 状結腸	○	S 状結腸切除, 膀胱部分切除, 左尿管新吻合, 人工肛門
6	越 智	1980	21	男	血尿, 頻尿	結 腸	○	回盲部膀胱間の癒着剝離, 回腸 S 状結腸部分切除
7	中 嶋	1980	20	男	排尿時痛	回 腸	×	回盲部・回空腸切除, 膀胱部分切除
8	富 岡	1980	17	男	腹痛, 微熱, 混濁尿, 頻尿	回 腸	×	回盲部切除, 膀胱部分切除
9	石 川	1892	16	男	気尿	S 状結腸	○	回腸結腸部分切除, 膀胱部分切除
10	柳 岡	1892	19	男	気尿	回 腸 S 状結腸	×	回盲部 S 状結腸切除, 膀胱部分切除
11	吉 田	1984	29	男	排尿時痛, 血尿	回 腸	×	回腸部分切除, 膀胱部分切除
12	服 部	1984	25	男	膿尿, 発熱	直 腸	○	回腸直腸 S 状結腸部分切除, 膀胱部分切除, 右腎尿管摘出
13	萩 中	1984	20	男	排尿時痛, 混濁尿	不 明	○	直腸楔状切除, 膀胱部分切除, 回盲部切除
14	比 嘉	1984	43	男	膿尿, 気尿	回 腸	○	回腸部分切除, 膀胱部分切除
15	比 嘉	1984	18	男	下腹部痛, 発熱	結 腸	×	結腸切除, 膀胱部分切除
16	今 中	1985	21	男	排尿時痛, 血尿	回 腸	×	回腸切除, 膀胱部分切除
17	児 島	1985	33	女	腹痛, 頻尿, 発熱, 膿尿	回 腸	×	回腸部分切除, 膀胱部分切除
18	山 本	1986	25	男	下腹部痛, 下痢, 排尿時痛	回 腸	×	回腸部分切除, 膀胱部分切除
19	滝 口	1986	27	男	下痢, 腹痛, 混濁尿	S 状結腸	○	横行結腸・S 状結腸吻合術, 結腸瘻造設
20	林	1986	35	男	下腹部痛, 下痢	回 腸	○	回盲部切除, 膀胱部分切除, 尿管膀胱吻合
21	古 賀	1986	20	男	腹痛, 排尿時痛, 下痢	回 腸	○	回腸部分切除, 膀胱部分切除
22	工 藤	1987	25	男	排尿時痛, 気尿, 膿尿	盲 腸	○	回盲部切除, 膀胱部分切除
23	田 仲	1987	29	男	下腹部痛, 発熱, 残尿感	回 腸	×	回腸部分切除, 膀胱部分切除, 尿管膀胱吻合
24	杉 山	1987	31	男	膿尿, 下腹部痛	回 腸	○	回腸部分切除, 癒着剝離
25	明 比	1988	35	男	膿尿, 排尿時痛, 発熱	回 腸	○	回腸部分切除, 結腸部分切除, 膀胱部分切除
26	桐 田	1989	31	女	下痢, 腹痛, 混濁尿	回 腸	○	回盲部切除, 膀胱部分切除, 小腸広範囲切除
27	セレスタ	1989	24	男	下痢, 頻尿, 気尿, 排尿時痛, 血尿	回 腸	○	回腸切除, 膀胱部分切除, S 状結腸部分切除
28	水 永	1989	43	女	頻尿, 排尿時痛, 気尿, 下痢, 腹痛	回 腸	○	回腸部分切除, 膀胱部分切除
29	自 験 例	1991	20	男	頻尿, 排尿時痛, 血尿	回 腸	○	施行せず.

tion による elemental diet の投与と昼間の経口低残渣食の併用一の開発, 発達があり, 社会生活を考慮した保存的治療が可能となった²³⁾. 本例のような保存的治療の有効例でも, 退院後に HEEH による栄養療法を継続することで再発が予防できる. 一方, 手術必要例においても, 栄養療法の施行により切除範囲を少なく, また術後合併症を予防できる可能性が示唆さ

れ, 保存的治療を第一選択として考慮する必要があるとされている²³⁾. さらに正田ら²⁴⁾は, クロウン病の病態を考えると, 術後にも保存的治療例同様に再発予防のために HEEH を施行すべきであると述べている. また, サラゾピリン等の薬物療法は, 保存的治療例, 手術治療例とも病勢に応じて併用すべきであるとされている^{24,25)}. 本例は約 1 年の観察期間であるが, クロ

ーン病による膀胱腸瘻に対しての保存的治療の有用性を支持する1例と思われた。ただし、若年者ほどクローン病の再発率が高いともいわれており、本例においても今後厳重な経過観察が必要と思われる。

結 語

20歳男性にみられたクローン病による膀胱腸瘻の1例を報告した。本症例は本邦第29例目であった。本疾患は従来手術の適応とされてきたが、本症例では保存的治療が奏効し、手術を施行せずに瘻孔が閉鎖した。今後クローン病による尿路系への合併症は増えていくと思われるが、その治療方針についての検討が必要であると考えた。

本論文の要旨は第475回日本泌尿器科学会東京地方会において発表した。

文 献

- 1) 長廻 紘: Crohn 病. 内科学. 上田英雄, 竹内重五郎編. 第四版, pp. 588-592, 朝倉書店, 東京, 1987
- 2) 日本消化器病学会クローン病検討委員会: Crohn 病診断基準(案). 日消病会誌 73: 1476, 1976
- 3) Crohn BB, Ginzburg L and Oppenheimer GD: Regional ileitis, a pathologic and clinical entity. JAMA 99: 1323-1329, 1932
- 4) 渡辺 晃: 限局性小腸炎. 分冊内科学第6巻. pp. 139-151, 南江堂, 東京, 1981
- 5) Kyle J: Urinary complications of Crohn's disease. World J Surg 4: 153-160, 1980
- 6) Kyle L and Murry CM: Ileovesical fistula in Crohn's disease. Surgery 66: 497-501, 1969
- 7) Talamini MA, Broe PJ and Cameron JL: Urinary fistula in Crohn's disease. Surgery 66: 497-501, 1969
- 8) Greenstein AJ, Sachar DB, Tzakis A, et al.: Course of enterovesical fistulas in Crohn's disease. Am J Surg 147: 788-792, 1984
- 9) Schraut WH and Block GE: Enterovesical fistula complicating Crohn's ileocolitis. Am J Gastroenterol 79: 186-190, 1984
- 10) Smith PJB, Williams RE and DeDombal AT: Genitourinary fistulae complicating Crohn's disease. Br J Urol 44: 657-661, 1972
- 11) Moisey CU, Williams JL: Vesicointestinal fistulae. Br J Urol 44: 662-666, 1972
- 12) Carson CC, Melek RS and Remie WH: Urologic aspects of vesicoenteric fistulas. J Urol 119: 744-746, 1978
- 13) Karamchandani MS and West CF: Vesicoenteric fistulas. Am J Surg 147: 681-683, 1984
- 14) Couris GD and Block MA: Intestinovesical fistula. Surgery 54: 736-742, 1963
- 15) Vargas AD, Quattlebaun RB and Scardino PL: Vesicoenteric fistula. Urology 3: 200-203, 1974
- 16) Lubbers EJ: Bladder fistulae in Crohn's disease. Arch Chir Neerl 31: 93-100, 1979
- 17) Barby RJ, Climents JL, Patrick JW, et al.: Genitourinary complications of granulomatous bowel disease. AJR 117: 297-306, 1973
- 18) 小西文雄, 武藤徹一郎, 沢田俊夫, ほか: Crohn 病の治療, 手術適応と手術方針. 臨床成人病 15: 729-737, 1985
- 19) Kirsner JB: Current medical and surgical opinions on important therapeutic issues in inflammatory bowel disease. Am J Surg 140: 391-395, 1980
- 20) Gorcey S and Katzka I: Operation always necessary for enterovesical fistulas in Crohn's disease? J Clin Gastroenterol 11: 396-398, 1989
- 21) Glass RE, Ritchie JK, Lennard JE, et al.: Internal fistulas in Crohn's disease. Dis Colon Rectum 28: 557-561, 1985
- 22) Morgolin ML and Korelitz BI: Management of bladder fistulas in Crohn's disease. J Clin Gastroenterol 11: 399-402, 1989
- 23) 松枝 啓, 小坂 秀, 中村俊也, ほか: クローン病の瘻孔治療, Total Elemental Enteral Hyperalimentation の治療効果の検討. 厚生省特定疾患難治性炎症性腸管障害調査研究班, 昭和63年度業績集: 176-180
- 24) 正田良介, 松枝 啓: 結腸皮膚瘻を生じた Crohn 病, 本症例の治療方針. 外科 52: 326-331, 1990
- 25) 小西文雄, 金澤晁太郎: 結腸皮膚瘻を生じた Crohn 病, 本症例の治療方針. 外科 52: 332-337, 1990

(Received on May 7, 1991)
(Accepted on August 6 1991)