

膿瘍内に骨形成を伴った尿膜管放線菌症の1例

長野赤十字病院泌尿器科 (部長: 竹前克朗)

小堀 善友, 松井 太*, 天野 俊康, 竹前 克朗

A CASE OF URACHAL ACTINOMYCOSIS WITH BONE FORMATION

Yoshitomo KOBORI, Futoshi MATSUI, Toshiyasu AMANO and Katsuro TAKEMAE

From the Department of Urology, Nagano Red Cross Hospital

We report a case of urachal actinomycosis with bone formation. A 76-year-old woman was admitted to our hospital with a complaint of gross hematuria. Cystoscopy revealed bleeding from the dome of the bladder wall. Magnetic resonance imaging revealed a mass extending from the dome of the bladder to just below the umbilicus. A urachal tumor was clinically suspected, and the mass was resected together with urachal remnant and part of the bladder wall. Pathological diagnosis of the specimen was actinomycosis. The bone tissue was found in the abscess. Actinomycosis is a chronic suppurative infection caused by *Actinomyces israelii*. Although urachal actinomycosis is a rare disease, it is important to recognize this uncommon intrapelvic infection as the differential diagnosis of any intrapelvic mass.

(Acta Urol. Jpn. 50 : 709-711, 2004)

Key words: Actinomycosis, Urachal tumor, Bone formation

緒 言

放線菌症はアクチノミセス菌属によって惹起される慢性の化膿性肉芽腫性疾患であり, 尿膜管発生は比較的稀である。今回, 76歳, 女性に生じた膿瘍内に骨形成を伴った尿膜管放線菌症を経験したので報告する。

症 例

患者: 76歳, 女性

主訴: 肉眼的血尿

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 肝硬変 (HBV 陽性)

現病歴: 2001年6月に血膿尿出現。近医を受診し膀胱鏡施行された。頂部右寄りに陥凹あり, その箇所より出血を認めた。精査目的に7月24日当院紹介された。

入院時現症: 身長 151cm, 体重 55.0 kg, 体温 36.8°C, 血圧 124/70 mmHg, 胸腹部・外陰部理学的所見に異常なし。表在性リンパ節触知せず

検査成績: 血算 WBC 3,400/ μ l, RBC 278×10^4 / μ l, Hb 9.9 g/dl, HCT 29%と貧血を認めた。PLT 6.7×10^4 / μ l, AST 78 IU/l, ALT 56 IU/l, LDH 269 IU/l, Tbil 1.4 mg/dl, ALB 2.9 g/dl と肝硬変による肝機能障害を認めた。CRP は 0.9 mg/dl と軽度

の炎症反応を認めた。尿所見では RBC 100以上/HPF, WBC 10~19/HPF, 尿細胞診は class II, 尿好気培養は陰性であり, 嫌気培養は検査されなかった。

画像検査所見: 膀胱鏡検査においては膀胱頂部右寄りに陥凹を認め憩室様になっており, そこより血液の流出を認めた。超音波検査では膀胱頂部に径 5 cm 大の low echoic の腫瘤を認めた。MRI では膀胱頂部に T1, T2 強調像共に内部均一で境界明瞭な中程度の intensity を認める腫瘤と, そこより正中臍索へ伸びる索状物を認めた (Fig. 1)。腫瘤には造影効果を認

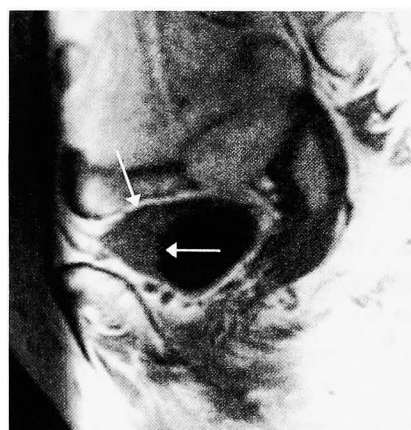


Fig. 1. MRI (T1 weighted image) of a sagittal view showed a solid mass on the dome of the bladder (arrows).

* 現: 金沢大学医学部附属病院泌尿器科

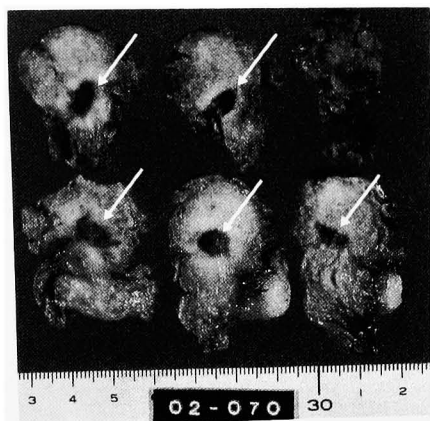


Fig. 2. Gross appearance of cut surface of the removed specimen. The abscess was found in the removed specimen (arrows).

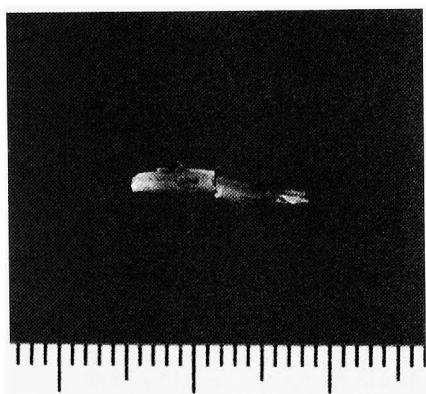


Fig. 3. The bone tissue was found in the abscess.



Fig. 4. Actinomyces drusen (arrows) were found in the abscess (HE stain, $\times 50$).

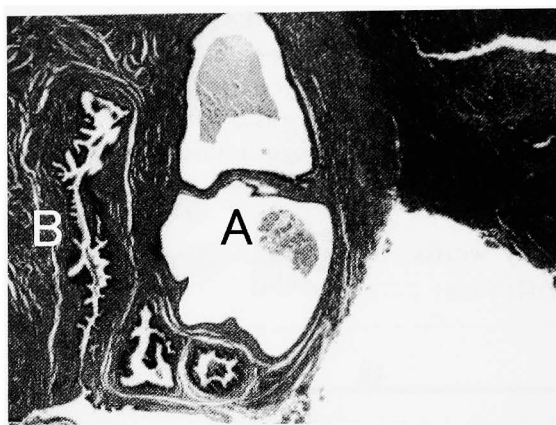


Fig. 5. A: Urachal remnant. B: Muscular coat of urinary bladder (HE stain, $\times 10$).

めた。以上の所見より尿膜管腫瘍の診断のもと、2002年1月14日尿膜管部腫瘍切除術および膀胱部分切除術を施行した。

手術所見：腫瘍は膀胱頂部右寄りにあり、周囲との境界は明瞭で、容易に剝離可能であった。尿膜管部の腫瘍を中心に膀胱部分切除術および腫瘍切除術を施行した。術中術後に濃厚赤血球と血小板の輸血を必要としたが、術後経過は良好であった。

摘出標本：固有組織周囲の脂肪組織内に径8 mm、長さ30 mm前後の暗赤色の病巣があり (Fig. 2)、中心部に径1.5 mm、長さ13 mmの中空性の骨様硬組織が入っていた (Fig. 3)。暗赤色の病巣は慢性の膿瘍で、内腔に放線菌塊が散見された (Fig. 4)。病巣のほぼ中央に接する固有筋層には尿膜管由来と考えられる管腔が散見され (Fig. 5)、尿膜管に発生した放線菌症と診断された。膿瘍と膀胱内腔との交通は証明できなかった。

骨様硬組織を脱灰して検索したところ、主に周辺には長軸に平行する太い膠原線維が見られ、内側の所々には層状の lamellar bone の構造を認めた。周辺の平

行する膠原線維間には細胞が脱落した骨小腔様空隙が散見し、lamellar bone の一部には明らかな骨細胞が認められた。このような状況下に骨細胞が見られるということは骨（化生骨）新生があるものと考えられた。

経過：手術後は軽度の頻尿を認める以外問題なく、外来にて経過観察となった。術後に抗生物質の投与 (ABPC/SBT 3.0 g/day $\times$ 7 days) を行うことで、術後2年の現在再発を認めていない。

考 察

放線菌症は主としてグラム陽性の嫌気性菌である *Actinomyces Israelii* の感染によって引き起こされる慢性化膿性肉芽腫性疾患であるが、近年は抗生物質の発達により報告例は減少し、非常に稀な疾患となっている。*Actinomyces* は“actino- (放線状の) + myces (菌)” からの造語が示すごとく、細菌とほぼ同じ幅をもつグラム陽性の分枝した菌糸が、菌塊の周辺部で環状をなして放射線状に発育する。病理組織学的には炎症性細胞浸潤と結合組織の増生、病変中に菌塊

(Druse) や菌塊周縁の棍棒状構造 (Club formation) が形成されることが特徴である¹⁾ 一般には顔面、頸部、胸部および回盲部に好発するとされており諸家の報告でも顔頸部に多いとするもの、あるいは腹部に多いとするものもあり一定していない²⁾ 尿路系の放線菌症は腎、膀胱、尿膜管に発生した報告例が散見される³⁾がいずれも比較的稀である。

感染経路として、骨盤腔内では避妊具である子宮内避妊器具 (IUD) 長期装着者への発生例⁴⁾や、虫垂炎よりの感染⁵⁾が報告されているが、本症例ではそのようなエピソードはなかった。また、膀胱より感染が波及したとの報告もある⁶⁾ 本症例でも膀胱炎症状、血尿、膀胱壁に陥凹などを認めたが、これらの症状も膀胱放線菌症の特有の症状ではなく、感染経路を特定することはできなかった。

放線菌症の画像所見は非特異的であり、画像上確定診断に至ることは困難である。放線菌感染により生じた慢性炎症は多発膿瘍、肉芽および線維性組織を形成しながら増大し、周囲に浸潤性に進展する慢性化膿性肉芽腫性腫瘤を形成していくため、その時期により異なる画像所見を呈すると考えられる⁷⁾ 治療前に病理学的確定診断がなされた報告は少なく¹⁾、過去の尿膜管放線菌症の報告例を見ても、ほとんどすべての症例が術前に尿膜管腫瘍と診断されており⁸⁾、本症の術前診断の難しさが示唆されている。最終的に手術後組織診断に頼らざるを得ないのが現状である。

本症例では、膿瘍内に骨組織を認めた。魚骨腸管穿孔に続発した下腹部放線菌症も報告されている⁹⁾が、本症例では腫瘤内に周囲の細胞から化生したと考えられる骨新生を認め、魚骨とは異なっていた。腫瘤内の骨形成の原因に関しては、以下の3つの機序が考えられている。①腫瘤細胞により結合組織に組織誘導が生じて、線維芽細胞から骨芽細胞への転換が起こり、異所性骨形成が生じる。②腫瘤発生早期の骨細胞の迷入が起こり、結合組織の骨細胞への分化が生じ、骨形成が起こる。③腫瘤内の出血、壊死の結果石灰沈着を起こし異所性の骨形成が生じる¹⁰⁾ 本症例においては、膿瘍内の骨形成であり③の機序により骨形成が生じたものと思われた。現在までに放線菌症の膿瘍内に骨形成を生じたという報告例はない。

治療は切開排膿、腫瘤摘出術と言った外科的処置およびペニシリン系抗生物質投与の内科的治療があるが、各々単独治療では根治が難しく、外科的摘出術とペニシリン長期投与療法を組み合わせることにより

90%近く、あるいはそれ以上の根治率であると報告されている¹¹⁾ 本症例においても、尿膜管腫瘍との鑑別が非常に難しかったため、結果的には手術を施行することとなったが、手術療法と術後抗生物質の投与により、現在まで再発を認めておらず、適切な治療であったと考えられた。

結 語

膿瘍内に骨形成を伴った尿膜管放線菌症の1例を経験したので、若干の文献的考察を付け加えて報告した。

本論文の要旨は、第145回日本泌尿器科学会信州地方会において報告した。

文 献

- 1) 石光 広, 望月英樹, 浅野耕助, ほか: 骨盤内放線菌症の1例. 西日泌尿 **65**: 501-504, 2003
- 2) 垣本 滋, 白石和孝, 近藤 厚, ほか: Perivesical Actinomycosisの1例. 西日泌尿 **51**: 1609-1612, 1989
- 3) 松村善昭, 今村正明, 奥村和弘, ほか: 膀胱放線菌症の1例. 泌尿紀要 **49**: 659-661, 2003
- 4) Anthony SF: Intrauterine contraceptive device-associated actinomycotic abscess and actinomyces detection on cervical smear. Obstet Gynecol **87**: 142-149, 1996
- 5) Citron JR, Pino AD and Duart B: Abdominal actinomycosis. Br J Urol **76**: 263-264, 1995
- 6) 西田 亨, 山田智二, 中村恭二, ほか: 放線菌感染による尿膜管の慢性炎症性肉芽腫の1例. 臨泌 **29**: 551-555, 1975
- 7) 藤村紀子, 須田博喜, 林 大資, ほか: 腸間膜腫瘍との鑑別が困難であった放線菌症の1例. 臨放線 **46**: 942-946, 2001
- 8) 及川剛宏, 野村博之, 金水英俊, ほか: 尿膜管放線菌症の1例. 泌尿器外科 **13**: 671-675, 2000
- 9) 西 光雄, 松村陽右, 森岡政明ほか: 魚骨腸管穿孔に続発した下腹部放線菌症の1例. 臨泌 **29**: 365-369, 1978
- 10) 森山泰成, 藤井令央奈, 新谷寧世, ほか: 骨形成を伴った腎細胞癌の1例. 泌尿紀要 **48**: 603-605, 2002
- 11) 伊藤勝基: 腸放線菌症. 別冊日本臨床 領域別症候群23感染症症候群 I, pp 503-505, 日本臨床社, 大阪, 1999

(Received on April 51, 2004)
(Accepted on May 11, 2004)