

フルニエ壊疽に類似した陰茎壊疽性膿皮症の1例

柑本 康夫, 稲垣 武, 射場 昭典, 吉川 和朗
鈴木 淳史, 上門 康成, 新家 俊明
和歌山県立医科大学泌尿器科学教室

PYODERMA GANGRENOsum OF THE PENIS PRESENTING AS FOURNIER'S GANGRENE: A CASE REPORT

Yasuo KOHJIMOTO, Takeshi INAGAKI, Akinori IBA, Kazuro KIKKAWA,
Atsushi SUZUKI, Yasunari UEKADO and Toshiaki SHINKA
The Department of Urology, Wakayama Medical University

We report a case of pyoderma gangrenosum of the penis presenting as Fournier's gangrene. A 77-year-old man who had undergone radiotherapy for localized prostate cancer 16 month earlier, presented with penile pain and fever. Symptoms began with erythema and induration on the dorsal surface of the penile shaft followed by spontaneous purulent drainage with severe pain. Magnetic resonance imaging was unremarkable except for swelling of the penile skin. Biopsy of the ulcerative penile lesion demonstrated a nonspecific inflammation without vasculitis or malignancy. Despite broad-spectrum antibiotics and debridement, the penile lesion extended and new satellite lesions developed as pustules on the glans. Since cultures were negative for aerobic and anaerobic bacteria, a course of intravenous prednisolone was then initiated at 100 mg/day. Within 24 hours the temperature normalized, progression of the penile lesions stopped and became convalescent. The steroid was then tapered and discontinued. The penile lesions healed slowly during the subsequent 1-month period. Based on the clinical course and histopathological findings as well as exclusion of other ulcerative conditions, a diagnosis of pyoderma gangrenosum was made. Penile involvement of this non-infectious ulcerating skin disease has rarely been reported. Pyoderma gangrenosum affecting the penile skin, such as that in present case, may show a similar presentation as Fournier's gangrene. Prompt differential diagnosis is mandatory since effective management for each processes is markedly different.

(Hinyokika Kiyo 51: 411-415, 2005)

Key words: Pyoderma Gangrenosum, Penis, Fournier's gangrene

緒 言

壊疽性膿皮症は非細菌性の慢性炎症により皮膚に進行性潰瘍をきたす稀な疾患であり¹⁾, 下肢に好発するとされているが, 陰茎への発生はきわめて稀である²⁾。今回, われわれは陰茎の発赤, 硬結にはじまり, 自壊, 膿汁流出を来したため, フルニエ壊疽との鑑別が困難であった陰茎壊疽性膿皮症を経験したので, 考察を加え報告する。

症 例

患者: 77歳, 男性

主訴: 陰茎痛および発熱

既往歴 家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 2003年2月, 近医でPSA 25.5 ng/mlと高値を指摘され当科紹介となった。限局性前立腺癌 (moderately differentiated adenocarcinoma, Gleason's score 3+3) の診断で, 外照射 (50 Gy) および高線量

率組織内照射 (15 Gy) による放射線療法を施行した。以後, 外来で経過観察中であったが, 2004年8月23日, 陰茎痛および発熱を訴え当科再診。陰茎背側に発赤, 硬結を認めたため, レボフロキサシンの経口投与を行ったが, 9月1日, 同部の自壊, 排膿を認めたため, 緊急入院となった。

入院時現症: 身長 153 cm, 体重 45 kg, 体温 37.5 °C。陰茎背側は腫大, 硬化し, 潰瘍形成を伴っていた (Fig. 1)。陰囊および鼠径部には異常はみられなかった。直腸診上, 前立腺はクルミ大, 左葉に癌による硬結を触知するも圧痛はみられず

入院時検査成績: 血液一般; WBC 9,500/ μ l, RBC 308 $\times 10^4$ / μ l, Hb 10.0 g/dl, Ht 32.2 %, PLT 33.5 $\times 10^4$ / μ l, 血液生化学; TP 5.8 g/dl, Alb 2.2 g/dl, CRP 25.3 mg/dl。貧血, 低タンパク血症, CRPの上昇を認める以外, 他に異常はみられなかった。PSAは1.46 ng/mlまで下降していた。尿沈渣; RBC 1~3/F, WBC 5~7/F, 細菌 (-)。

画像検査：外陰部 MRI では、陰茎背側の皮膚の肥厚が認められたが、陰茎海綿体に異常はみられなかった。また、前立腺にも異常はみられなかったことか



Fig. 1. Photograph of the penile lesion taken on September 1.

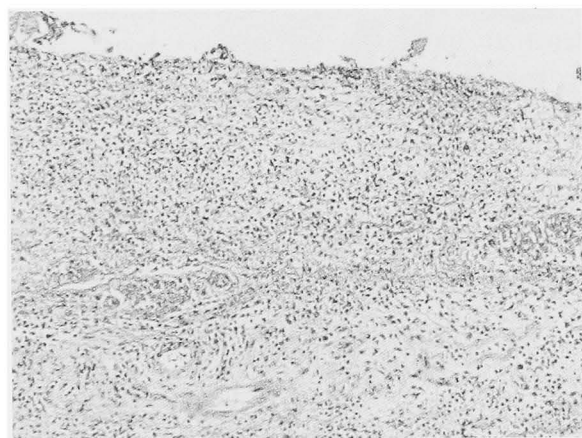


Fig. 2. Histopathology of biopsy showing a nonspecific inflammation (HE ×40).

ら、前立腺組織内照射による副作用は否定的であった。

入院後経過：細菌感染による炎症性病変と判断し、入院時に病変部のデブリドメンを行った。潰瘍はBuck 筋膜に波及していたが、海綿体白膜は保たれていた。潰瘍部の生検では、非特異的な炎症所見をみるのみで、血管炎や悪性所見は認められなかった (Fig. 2)。Fig. 3 に示すように、入院後はメロペネム三水和物、さらにメシル酸バズフロキサシンの点滴静注およびガンマグロブリン製剤の投与を行ったが、疼痛の増強とともに病巣は急速に拡大し、亀頭や陰茎腹側にも波及した (Fig. 4)。陰茎切除術も考慮したが、入院時に提出していた膿汁の一般細菌培養、嫌気性菌培養および結核菌同定 PCR 法が陰性と判明したことから非細菌性病変の可能性を考え、ステロイドを投与することとした。9月7日にプレドニゾロン静注を100 mg/日で開始したところ、翌日より体温は正常化、CRP も陰性化し、疼痛および潰瘍性病変は徐々に改善に向かった。ステロイドは病巣の縮小とともに漸減し、9月28日には中止の上、退院となった。なお、経過中に二次的に MRSA の感染を来したが、テイコブラニン投与により細菌感染が拡大することはなかった。10月25日の外来受診時には、病巣は瘢痕を形成して完全に治癒していた。発症後3カ月の現在まで再発はみられず、勃起も正常に保たれている。

考 察

陰茎および陰囊に潰瘍形成を来す疾患を Table 1 にまとめた^{3,4)}。フルニエ壊疽は、急激な経過をとる細菌感染による外陰部の壊死性筋膜炎であり⁴⁾、自験例でも、その発症様式や病巣の自壊、膿汁流出をみたことから、当初は本症を疑っていた。フルニエ壊疽では

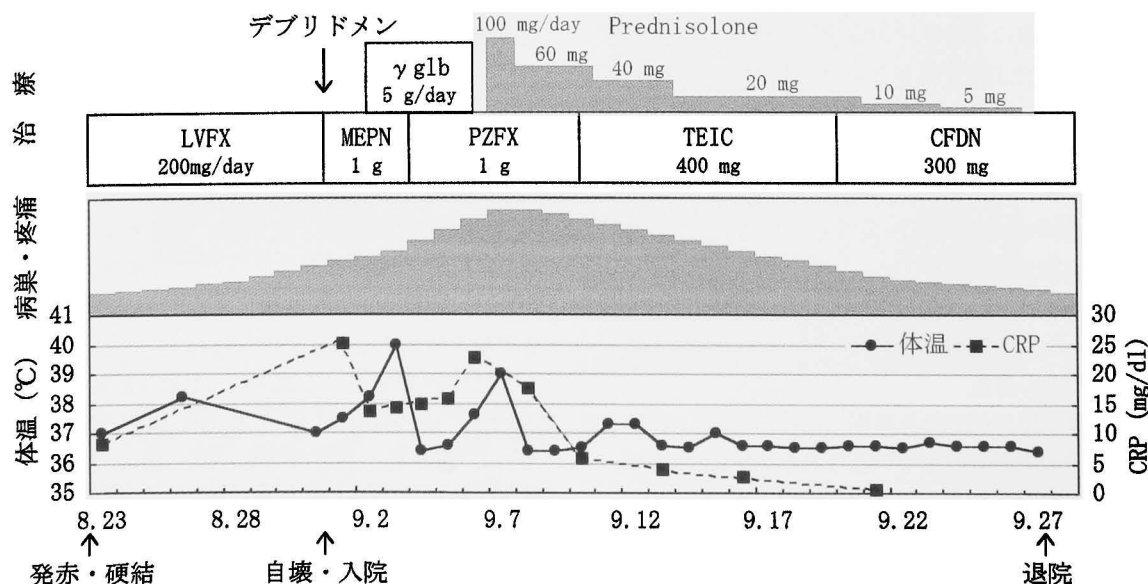


Fig. 3. Clinical course and laboratory data.

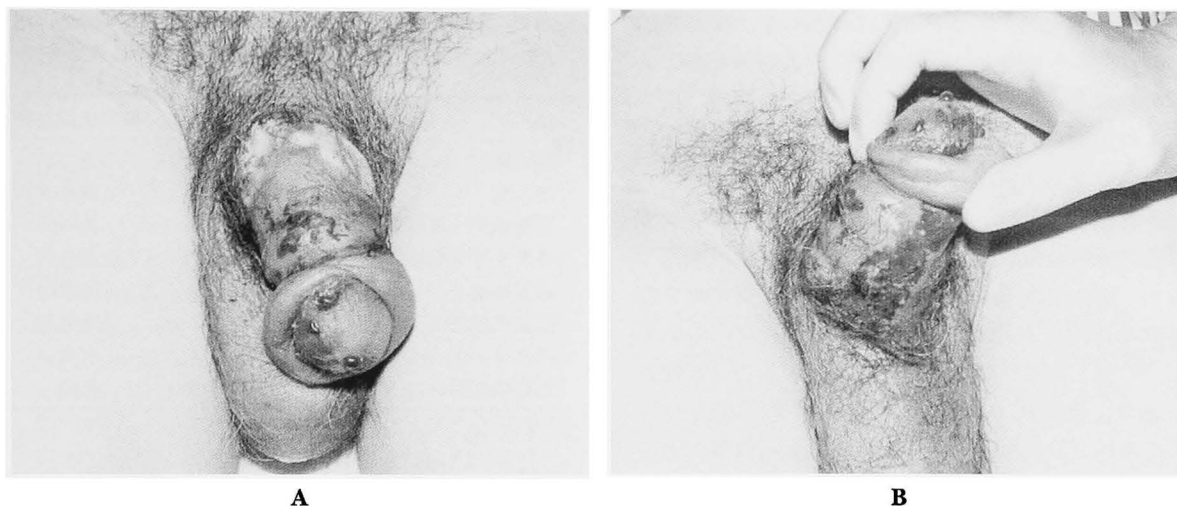


Fig. 4. Photograph of the penile lesion taken on September 7.

Table 1. Differential diagnosis of penile ulcers

感染性	持続勃起症
フルニエ壊疽	血管炎
性感染症	腫瘍
皮膚結核	扁平上皮癌
壊疽性膿瘡	疣状癌
深在性真菌症	基底細胞癌
血管性	ペーチェット病
糖尿病	増殖性天疱瘡
慢性腎不全	壊疽性膿皮症
心不全	薬疹
カルシフィラキシー	外傷性潰瘍
コレステロール塞栓症	

炎症が Colle's 筋膜に沿って進展することから、鼠径部や陰囊部にも波及すると考えられるが、自験例では病変は陰茎に局限しており、経過中、亀頭部には非連続性の膿疱様病変が認められた。また、膿汁の細菌培養が陰性であったこと、さらに、デブリドメンや広域抗生剤投与が無効であったことから、細菌感染以外の病態を考慮するに至った。糖尿病や慢性腎不全患者にみられる末梢血管閉塞や種々の血管炎によって陰茎に壊疽や潰瘍形成を来した例も報告されているが⁴⁾、生検組織像からは、こうした血管性の病態や悪性腫瘍は否定的であった。また、自験例は前立腺癌に対して外照射および高線量率組織内照射を受けていたが、周辺

Table 2. Pyoderma gangrenosum of the penis reported in the literature

報告者	年	陰茎以外の病巣	合併症	外科的処置		薬物療法	
				術式	効果	薬剤	効果
Wahba A ⁷⁾	1979	陰囊・鼠径部	CLL	—	—	ステロイド	有効
Sanusi ID ⁸⁾	1982	陰囊・会陰部	UC	結腸切除術	有効	ステロイド	無効
阿部稔彦 ⁹⁾	1983	顔面	UC	—	—	ステロイド	有効
Harto A ¹⁰⁾	1985	陰囊・体幹・四肢	—	—	—	ステロイド+ミノサイクリン	有効
Baskin LS ¹¹⁾	1990	陰囊・体幹・顔面	—	デブリドメン	増悪	ステロイド	有効
Herrera Sanchez M ¹²⁾	1997	—	—	—	—	ステロイド	有効
川上芳明 ¹³⁾	1997	大腿	UC	環状切除術	増悪	ステロイド	有効
Farrell AM ²⁾	1998	—	—	環状切除術	増悪	ステロイド+ミノサイクリン+サリドマイド	有効
Farrell AM ²⁾	1998	大腿	—	—	—	ステロイド+ミノサイクリン	有効
Gungor E ³⁾	1999	—	—	—	—	ステロイド	有効
牧角和彦 ⁶⁾	1999	—	—	—	—	ステロイド	有効
小西洋子 ¹⁴⁾	1999	—	—	—	—	ステロイド	有効
佐藤香織 ¹⁵⁾	2002	体幹・上肢	UC	—	—	ステロイド	有効
Gonzalzo ML ¹⁶⁾	2003	—	UC	切開排膿	無効	ステロイド	有効
Lee DK ¹⁷⁾	2003	—	—	潰瘍切除	増悪	ステロイド+シクロスポリン	有効
奈路田拓史 ¹⁸⁾	2004	下肢	—	デブリドメン	無効	ステロイド	有効
自験例	2005	—	—	デブリドメン	増悪	ステロイド	有効

UC: ulcerative colitis, CLL: chronic lymphatic leukemia.

の皮膚に萎縮や脱毛などの所見はみられず、前立腺にも異常は認められなかったことから、放射線障害によるものとは考えられなかった。その他の鑑別疾患についても典型的な所見に乏しいことから、除外診断として自験例は壊疽性膿皮症であるとの結論に至った。

壊疽性膿皮症とは、細菌感染が直接関与しない皮膚の進行性壊疽性潰瘍を主症状とした慢性炎症性疾患である¹⁾ 1930年に Brunsting ら⁵⁾ によってはじめて報告されて以来、本邦でも300例以上の報告がみられている。しばしば特定の全身疾患を合併することが知られており、潰瘍性大腸炎をはじめ、慢性関節リウマチ、全身性エリテマトーゼス、大動脈炎症候群、さらに血液悪性腫瘍などの合併が報告されている。病因は未だ明らかにされていないが、前述のごとく自己免疫疾患の合併がみられることや、ステロイドが有効であることから、免疫異常の関与が指摘されている¹⁾

病巣は通常、小水疱、小膿疱、小結節などで始まり、短期間で自壊して疼痛を伴った潰瘍を形成する⁶⁾。好発部位は下肢で、ときに体幹や顔面にもみられる。一方、自験例のような陰茎発生はきわめて稀で、これまで欧米で10例、本邦でも自験例を含めて7例の報告がみられるに過ぎない (Table 2)^{2, 3, 6, 7-18)} その原因として、佐藤らは陰茎が血管に富み、皮下脂肪組織がないという解剖学的特徴から本症に特異的な皮疹を呈しにくいこと、また細菌感染を起こしやすい部位であることから二次的な修飾が加わり診断に至らない可能性を指摘している¹⁵⁾

本症は特異的な臨床検査所見に乏しく、皮疹の性状が診断根拠となり、他の疾患を除外したうえで診断される^{3, 15, 17)} 自験例では、病巣が好発部位以外の陰茎に局限しており、発症初期には典型的な膿疱がみられなかったことから診断に難渋した。一方、陰茎発生例においても、9例に陰茎以外の病巣が、また、6例に潰瘍性大腸炎などの合併がみられており (Table 2)、こうした随伴病巣や全身合併症の存在は診断の助けになるであろうと思われる。また、病変部の生検では、非特異的な炎症や潰瘍の像がみられるのみであるが、悪性腫瘍や他の鑑別疾患を除外するために必須の検査である^{3, 17)}

本症の治療としては、一般にステロイドの投与による免疫抑制が有効とされている。投与法はプレドニゾロンを40～100 mgで開始し、以後、漸減する方法がとられていることが多い¹⁷⁾ 陰茎発生例においても、全例にステロイドの投与が行われており、1例を除き治癒が得られている。また、ステロイドの減量を目的にミノサイクリン、サリドマイドあるいはシクロスポリンの併用が行われた例もみられた。一方、Sanusiらはステロイドが無効で、潰瘍性大腸炎に対する結腸切除術後に皮膚病変の改善がみられた例を報告してお

Table 3. Clinical characteristics distinguishing Fournier's gangrene from pyoderma gangrenosum

	フルニエ壊疽	壊疽性膿皮症
発熱	あり	あり
疼痛	あり	あり
皮膚壊死・潰瘍形成	あり	あり
サテライト病巣	なし	あり
細菌培養	陽性	陰性
抗菌化学療法	有効	無効
ステロイド	無効	有効
外科的処置	有効	無効

り⁸⁾、基礎疾患に対する適切な治療も重要とされている¹⁷⁾

また、自験例を含む7例では、細菌感染との初期診断の下、デブリドメンや包皮環状切除術などの外科的処置が行われていたが、全例で無効あるいは病巣の増悪を来しており、うち1例は亀頭の脱落に至っていた¹³⁾ このように、壊疽性膿皮症では外傷や手術により病巣の拡大、いわゆる pathergy を来すため^{11, 17)}、自験例のごとくフルニエ壊疽とまぎらわしい例では、早期に両者の鑑別を行うことが望まれる。Table 3のように、両疾患とも発熱、疼痛、皮膚壊死や潰瘍形成などの類似した臨床所見を呈するが、サテライト病巣の有無や細菌培養の結果から鑑別が可能である¹¹⁾ しかしながら、ともに急激な経過をとる疾患であり、とりわけフルニエ壊疽においては、救命のために早期のデブリドメンおよび広域抗生剤投与が求められるため⁴⁾、自験例のように細菌培養の結果が判明するのを待つことなくデブリドメンに踏み切りざるを得ない例も少なくないと思われる。こうしたデブリドメンや抗菌化学療法による初期治療に反応しない例では、稀ではあるが壊疽性膿皮症を念頭に置き、ステロイド療法に変更すべきであることを認識する必要があると考えられる。

結 語

フルニエ壊疽との鑑別が困難であった陰茎壊疽性膿皮症の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告した。壊疽性膿皮症は稀ではあるが陰茎にも発症し得ること、また、両疾患の治療法はまったく異なるためその鑑別が重要であることを強調したい。

本論文の要旨は第186回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Wollina U: Clinical management of pyoderma gangrenosum. Am J Clin Dermatol 3: 149-158, 2002

- 2) Farrell AM, Black MM, Bracka A, et al.: Pyoderma gangrenosum of the penis. *Br J Dermatol* **138**: 337-340, 1998
- 3) Gungor E, Karakayali G, Alli N, et al.: Penile pyoderma gangrenosum. *J Eur Acad Dermatol Venereol* **12**: 59-62, 1999
- 4) Smith GL, Bunker CB and Dinneen MD: Fournier's gangrene. *Br J Urol* **81**: 347-355, 1998
- 5) Brunsting LA, Goeckerman WH and O'Leary PA: Pyoderma (ecthyma) gangrenosum: clinical and experimental observations in five cases occurring in adults. *Arch Dermatol Syph* **22**: 655-680, 1930
- 6) 牧角和彦, 古畑壮一, 柳澤直子, ほか: 陰茎壊疽性膿皮症の1例. *臨泌* **53**: 809-811, 1999
- 7) Wahba A and Cohen HA: Herpes simplex virus isolation from pyoderma gangrenosum lesions in a patient with chronic lymphatic leukemia. *Dermatologica* **158**: 373-378, 1979
- 8) Sanusi ID, Gonzalez E and Venable DD: Pyoderma gangrenosum of penile and scrotal skin. *J Urol* **127**: 547-549, 1982
- 9) 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
- 10) Harto A, Gutierrez Sanz-Gadea C, Vives R, et al.: Pioderma gangrenoso en pene. *Actas Urol Esp* **9**: 263-266, 1985
- 11) Baskin LS, Dixon C, Stoller ML, et al.: Pyoderma gangrenosum presenting as Fournier's gangrene. *J Urol* **144**: 984-986, 1990
- 12) Herrera Sanchez M, Rojo Sanchez S, del Cerro Heredero M, et al.: Pyoderma gangrenosum of penile skin. *Int J Dermatol* **36**: 638-639, 1997
- 13) 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
- 14) 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
- 15) 佐藤香織, 長井泰樹, 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**: 610-612, 2002
- 16) Gonzalgo ML, deLacerda DA, DeMarzo AM, et al.: Persistent purulent drainage from the glans penis: atypical presentation of pyoderma gangrenosum. *J Urol* **169**: 1793-1794, 2003
- 17) Lee DK, Hinshaw M, Cripps D, et al.: Pyoderma gangrenosum of the penis. *J Urol* **170**: 185-186, 2003
- 18) 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陰茎壊疽性膿皮症の治療経験. *日性会誌* **19**: 200, 2004

(Received on January 13, 2005)

(Accepted on February 19, 2005)