

小児潰瘍性大腸炎の1例

岡山大学医学部放射線医学教室（主任教授：山本道夫）

江原一彦・上者郁夫・佐藤 功
橋本啓二・森本節夫・玉井豊理
森野靖雄・杉田勝彦・平木祥夫
青野 要・田辺正忠・山本道夫

（昭和54年〇月〇日受稿）

Key words：小児潰瘍性大腸炎，粘血性下痢便

緒 言

潰瘍性大腸炎はその本態と成因などについて種々の論議がある疾患であるが，1903年 Boas¹⁾が本症を Colitis ulcerosa と記載して以来，この呼称が広く用いられるようになった。小児科領域においては1923年 Helmholtz²⁾により初めて報告されて以来，主として欧米で多数の報告がみられるにもかかわらず，本邦では1952年中山ら³⁾によって初めて報告されて後，その症例報告は比較的少ないとされている⁴⁾。

私達は最近，10才9ヵ月男子の潰瘍性大腸炎と思われる1例に遭遇したので報告する。

症 例

患者：10才9ヵ月，男子（長男）

主訴：粘血性下痢便

現病歴：岡山大学附属病院小児科入院の約50日前より；何ら誘因なく1日1～2回，多い日には6～7回の粘血性下痢便が続いていた。近医に入院し注腸法による大腸X線検査を受けたが異常ないと言われた。便細菌検査の結果で抗生物質の投与を受けていたが，粘血便は改善されず，体重減少も認めため，精査の目的で当院小児科に入院した。

既往歴：5才の時風疹，非常に情緒不安定である。

家族歴：父親が時に蕁麻疹が出ることもある。その他特記すべきことはない。

入院時所見：栄養良。頭頸部，咽頭，胸部に理学的異常所見なく，腹部では肝，脾触知せず。左右下腹部に腸索各1本触知するが圧痛はない。

臨床検査所見：表-1に示す如く，好中球増多を

表1 入院時検査所見

血沈	1 hr. 5mm
	2 hr. 16mm
赤血球数393×10 ⁴ /mm ³
白血球数12,300/mm ³
血色素量12.5 g/dl
ヘマトクリット38%
白血球分類	
好中球	桿状核.....1.6%
	分葉核.....66.4
好酸球0.8
好塩基球0
単球4
リンパ球27.2
血清総蛋白量7.4 g/dl
血清蛋白分画異常なし
肝機能検査異常なし
CRP(-)
検便	
性状褐色泥状，血液，粘液，膿を混じる
潜血反応(+)
SS培地肺炎桿菌
赤痢菌	}検出せず
サルモネラ菌	
寄生虫卵検出せず
検尿・沈渣異常なし
胸部X線像異常なし
ツベルクリン反応陰性

伴なう白血球増多がみられた。便の性状は褐色泥状，血液，粘液，膿を混じ，SS培地では赤痢菌やサルモネラ菌は認められなかった。

注腸X線検査所見：造影剤の通過は正常で異常な狭窄や拡張はない。haustral pattern も大体正常であるが、左側結腸の軽い伸展不良像がある。粘膜浮腫のためと思われるが、造影剤の附着不良を認める。二重造影像ではS字状結腸より横行結腸まで、広範囲に粘膜面に無数の微小陥凹がみられ、網目像は消失している（図-1, 2, 3, 4）。また辺縁には小さなspiculationが認められる（図-2, 3）。上行結腸

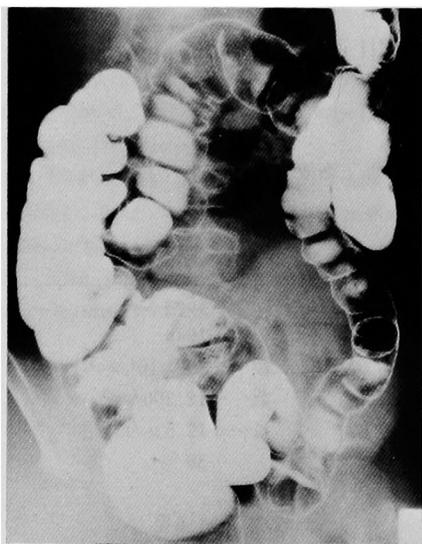


図1. 注腸X線検査

S字状結腸より横行結腸まで、広範囲に粘膜面に無数の微小陥凹がみられ、網目像は消失している。

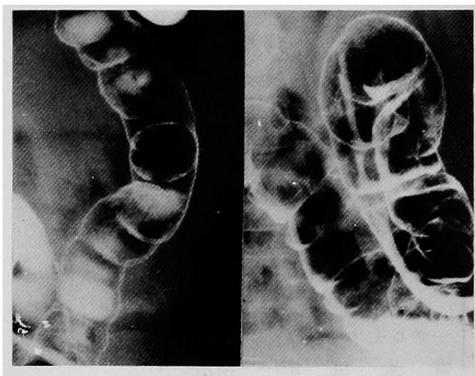


図2. S字状結腸～下行結腸の拡大像

図3. 脾彎曲部を中心とした拡大像

辺縁には小さな spiculationが認められる。

には異常所見は認められなかった。これらの所見より潰瘍性大腸炎と診断した。

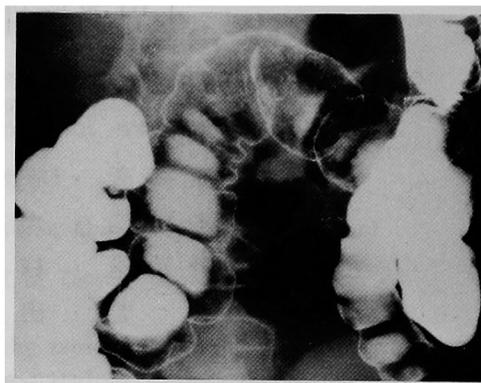


図4. 横行結腸二重造影拡大像

直腸鏡所見：軽度の浮腫，充血，易出血性とともになわずかの膿性分泌物が認められた。

生検所見：直腸生検では粘膜内に多数のリンパ球，形質細胞，好酸球の浸潤がみられた。

経過及び治療：注腸X線検査，直腸鏡検査及び生検により潰瘍性大腸炎と診断し，治療を開始した。食餌療法（高蛋白，高カロリー，高ビタミン食）を行ない，乳製品を制限した。経口的にサラゾピリン2.0g/dayとペニシリン系抗生物質を1.4g/day投与し，治療開始7日目には有形普通便の表面に少量の血液が附着するのみとなり，便性は急激に改善されたため，治療開始11日目より外来通院とした。外来通院中はサラゾピリン1.5g/day内服していたが，退院後5週目頃から再び1日7～8回の粘血性下痢便を認めるようになったため，再入院し，プレドニン50mg/day内服に切りかえた。プレドニン内服後2日目には下痢便が消失し粘液性軟便が1日に2回となったため，再び外来通院とした。同時にプレドニンを25mg/dayに減量し，2週目頃より有形普通便となった。

次いでプレドニンを5mg/dayに切りかえたところ1週目より，有形普通便の表面に少量の血液の附着が認められたため，プレドニン5mg/dayとサラゾピリン2.5g/dayの内服に変更した。翌日から血便はなくなり，5週目頃からはプレドニン5mgを3日間隔，サラゾピリン2.5g/dayとしたところ，経過が順調なため，10ヵ月目にはプレドニンを中止し，サラゾピリン2.5g/dayとした。

しかしその1ヵ月頃より1日2回の粘血便が持続したため，プレドニン40mg/dayとサラゾピリン2.5g/dayに変更したところ，5日目より有形普通便となった。

次いで2週目にプレドニン5mgを隔日とサラゾピ

リン2.5g/day 内服に変更し、12週目になるが経過は順調である。

考 察

本症はいかなる年齢でも発病し、成人では20~40才が70~80%を占め、20~30才代が最高であるといわれている^{5),6)}。本邦における本症の詳細な解析結果が横田ら⁷⁾により報告されており、発病者は増加傾向がみられると述べている。小児の占める発病率は、本邦では約6%⁶⁾、欧米では約10%⁸⁾と報告されている。小児における男女比は色々であり Hodgson ら⁹⁾は76:46, Hijmans ら⁸⁾は24:19, Holowach ら¹⁰⁾は6:12と述べている。初発症状は下痢、粘血便、粘液便、血便、腹痛、裏急後重、腹部膨満、体重減少、発熱、食思不振などで成人と同様であるが、Holowach ら¹⁰⁾は小児18例中3例は下痢のない下血

で始まり、この点が成人と異なるとしている。家族内発症例はほとんどみられない様であるが、入江¹¹⁾は兄弟3人に発生したと述べており、Avery ら¹²⁾は母子発症例について報告し、胎盤から大腸に対する抗体が胎児に移行するらしいと推測している。

本症の病因に関しては従来より種々の要因(精神的因子^{8),10)}、自己免疫学説¹³⁾、食餌アレルギー説¹⁴⁾など)が挙げられているが、いずれも反論があり決定的と思われるものはない様である。

診断法としてはX線、内視鏡、生検などがある。

X線検査について初めて記載したのは Stierlin¹⁵⁾で、それ以来多数の報告がみられる。Kalil ら¹⁶⁾は大腸辺縁の細かい鋸歯状の変化に注目し、これらは小さな潰瘍群であるとした。しかし Dassel¹⁷⁾はこれらの spiculation は Lieberkühn 腺に入ったバリウム像は病的所見ではなく正常な postevacuation film

表2 Ulcerative colitis と Granulomatous colitis のレントゲン所見

	<i>Ulcerative colitis</i>	<i>Granulomatous colitis</i>
Anatomic distribution	Total colon or left colon involved Rectum involved: changes in rectal valves; increased presacral soft tissue Ileum spared (except "backwash" ileitis)	Segmental or right colonic involvement Rectum spared Ileum frequently involved
Character of ulcerations	Shallow, superficial (less than 3 mm) "Collar button" ulcers	Deep, penetrating ulcers (greater than 3 mm); "collar button" ulcers Longitudinal ulcers traversed by shorter, transverse fissures
Other mucosal alterations	Pseudopolyps present as filling defects in barium-filled colon	"Cobblestone" pattern created by mucosal islands between longitudinal and transverse ulcers on postevacuation radiographs
Extent of involvement	Circumferential	Eccentric, with pseudo-diverticula formation
Fistula formation	Absent	Present when associated small bowel disease
Contraction of colon	Shortening and narrowing, but without strictures	Strictures; shortening and narrowing to lesser degree
Ileocecal valve and ileum	Gaping, edematous valve Patulous ileum secondary to "backwash" ileitis	Narrowed, contracted valve with contracted ileum and ileocecal fistulae
Colon cancer	Rare in childhood	Never in childhood

でもしばしば認められると述べている。

また潰瘍性大腸炎のX線診断に関する所見は多種多様の見解があり、Geffen¹⁸⁾によれば

- 1) postevacuation film でみられる異常な haustration
- 2) 充盈像でみられる haustration の異常ないし消失
- 3) 内腔の狭窄
- 4) 伸展性の低下
- 5) 腸管の短縮
- 6) 充盈像でみられる縦走性皺壁
- 7) 充盈像でみられる潰瘍
- 8) tone の低下
- 9) postevacuation film でみられる polyp 像
- 10) 微細な鋸歯状変化

などがしばしばみられ、信頼のおける所見とした。中でも内腔の狭窄、伸展性の低下、腸管の短縮、tone の低下の4つの所見は充盈像でも postevacuation film でも認められる重要な所見であると報告している。

Welin¹⁹⁾は潰瘍性大腸炎の初期像の描出に二重造影が優れており、やや不規則で微細な顆粒状の粘膜像として表わすことができ、この変化は可逆的であるという。また狩谷ら²⁰⁾は本症の早期には、多発散在する微小ニッシェ(小潰瘍)とともに「網目像」の一部消失、あるいは配列の乱れが認められるとしている。本症例もこの pattern を示している。

内視鏡検査の主要所見は血管透見像の乱れまたは消失、浮腫、充血、粘膜下点状出血、滲出、ビランまたは潰瘍、偽ポリープなど^{8),21,22)}とされるが、本症例では軽度の浮腫、充血、易出血性ととも、わずかの膿性分泌物を認めた。

生検組織学的検査の主要所見は、うっ血、浮腫、血栓形成、リンパ球浸潤、好酸球増多、形質細胞がみられ、この際同時に陰窩膿瘍(cryptabscess)^{22),23)}が有力な所見であると述べられている。本症例では生検組織内には cryptabscess は認められなかった。

Broberger ら²⁴⁾は小児潰瘍性大腸炎 115 例について検討し鑑別すべき主な疾患として大腸ポリープ、

Crohn's disease を挙げている。特に Crohn's disease が大腸のみに存在する場合には、鑑別が困難なことがあると述べている。Schapiro²⁵⁾は潰瘍性大腸炎と granulomatous colitis の鑑別を表2のように述べている。

治療としては各種ビタミン剤、各種ステロイド、ACTH、サルファ剤、抗生剤などが主に用いられる。また本症が自己免疫疾患であるとの説から 6 MP などの免疫抑制剤も試みられている。

外科的療法としては、急性で中毒症状の強いもの、腸狭窄、大出血、肛門周囲炎などを伴うもの及び内科的療法で反応せず再発するものなどに施行されている。

一方、腸以外の合併症として、関節疾患、結節性紅斑、発疹、腎障害、口内炎、肝脾腫など^{8),26)}が報告されているが、本症例では明らかなものはみられなかった。

予後について Michener ら²⁷⁾は15才未満 401 例の追跡で20年後の生存率は58.9%としており、Hodgson ら⁹⁾も予後は良くないと述べている。本邦では比較的軽症のものが多く、松永ら⁶⁾は死亡率6.7%としている。

本症の癌化については Holowach ら¹⁰⁾、Michener ら²⁷⁾、Korelitz ら²⁸⁾が報告しているが、成人より小児に発病した方が癌化率は高い様であり、中でも Korelitz らは小児84例を5~44年間(平均23年間)追跡し、10%に癌化がみられたとしている。本邦では成人例のみに癌化例の報告がなされている^{5),29)}。潰瘍性大腸炎の癌化は本邦での報告は少ないが、欧米ではかなり多いことから、常にその可能性を念頭において治療にあたるべきものと思われる。

結 語

最近経験した小児潰瘍性大腸炎の一例につきX線所見を中心に報告し、併せて若干の考察を行なった。

(なお論文の要旨は昭和53年7月22日、第50回日本医学放射線学会中・四国部会にて発表した。

文 献

1. Boas, I.: Ueber einen Fall von operativ geheilter Colitis ulcerosa. *Deutsch. Med. Wschr.* **29**, 196, 1903.
2. Helmholz, H.F.: Chronic ulcerative colitis in children. *Am. J. Dis. Child.* **26**, 418-430, 1923.
3. 中山健太郎, 山本剛正, 久保田聰子: 小児期の潰瘍性大腸炎—文献総説及び乳児の一部検例—. *児科診療*, **15**, 237-244, 1952.
4. 小林茂雄, 西沢 護, 野本一夫, 狩谷 淳, 林 学, 水野幸一, 間山素行, 篠塚 忠, 数馬欣一, 林竜哉: 小児の潰瘍性大腸炎. *胃と腸*, **8**, 807-811, 1973.
5. 名尾良憲, 村上義次, 牧 泰, 小幡 裕, 小林 晃, 片野てい子, 高松道雄: 潰瘍性大腸炎の診断と治療. *治療*, **45**, 1965-1978, 1963.
6. 松永藤雄, 斎藤幸一, 伊藤 弘, 中川原義美, 雪田成夫, 村上源四郎: 日本における潰瘍性大腸炎の診療の現況. *日医新報*, No. 1763: 3-10, 1958. *日医新報*, No. 1764: 25-41, 1958. *日医新報*, No. 1765: 24-31, 1958.
7. 横田 曄, 宇都宮利善, 鈴木紘一: 日本における潰瘍性大腸炎の統計. *胃と腸*, **11**, 1023-1028, 1976.
8. Hijmans, J.C. and Enzer, N.B.: Ulcerative colitis in childhood. *Pediatrics* **29**, 389-403, 1962.
9. Hodgson, J. and Kennedy, R.: The roentgenologic aspects of chronic ulcerative colitis in children. *Radiology* **65**, 671-679, 1955.
10. Holowach, J. and Thurston, D.L.: Chronic ulcerative colitis in childhood. *J. Pediatr* **48**, 279-291, 1956.
11. 入江英博: 小児潰瘍性大腸炎. *臨床消化器病学*, **6**, 75-79, 1958.
12. Avery, G.B. and Harkness, M.: Bloody diarrhea in the newborn infant of a mother with ulcerative colitis. *Pediatrics*, **34**, 875-877, 1964.
13. Broberger, O. and Perlmann, P.: Autoantibodies in human ulcerative colitis. *J. Exp. Med.* **110**, 657-674, 1959.
14. Andresen, A.F.R.: *Office Gastroenterology* p. 355, Saunders. 1958.
15. Stierlin, E.: Zur Röntgendiagnostik der colitis ulcerosa. *Z. Klin. Med.* **75**, 486-493, 1921.
16. Kalil, T.H. and Robbins, L.L.: Early roentgenologic changes in idiopathic ulcerative colitis. *Radiology* **53**, 1-10, 1949.
17. Dassel, P.M.: Innocuous filling of the intestinal glands of the colon during barium enema (Spiculation) simulating organic disease. *Radiology* **78**, 799-801, 1962.
18. Geffen, N.: Radiological signs of ulcerative colitis: assessment of their reliability by means of observer variation studies. *Gut* **9**, 150-156, 1968.
19. Welin, S.: Advances in roentgen diagnosis of ulcerative colitis. *Acta Chir. Scand.* **125**, 482-484, 1963.
20. 狩谷 淳, 西沢 護, 野本一夫, 伊藤俊夫, 上野正己, 林 学, 小林茂雄, 吉川保雄, 白壁彦夫: 大腸二重造影法の基本的X線像について. *臨床放射線*, **16**, 885-895, 1971.
21. 山口 保, 田島 強: 潰瘍性大腸炎の内視鏡検査. *胃と腸*, **4**, 1501-1510, 1969.
22. 渡辺 晃: 潰瘍性大腸炎の臨床. *胃と腸*, **4**, 1491-1500, 1969.
23. Mottet, N.K.: *Histopathologic Spectrum of Regional Enteritis and Ulcerative colitis*. Saunders Co. 1971.
24. Broberger, O. and Lagercrantz, R.: *Advances in Pediatrics*, Vol. XIV, 9, 1966.
25. Schapiro, R.L.: *Clinical Radiology of the Pediatric Abdomen and Gastrointestinal tract*, University Park Press, Baltimore·London·Tokyo, 1976.
26. Lagercrantz, R., Winberg, J. and Zetterström, R.: Extra-colonic manifestations in chronic ulcerative

- colitis. *Acta Paediatr.* 47, 675-687, 1958.
27. Michener, W.M., Gase, R.P., Sauer, W.G. and Stickler, G.B.: The prognosis of chronic ulcerative colitis in children. *N. Engl. J. Med.* 265, 1075-1079, 1961.
28. Korelitz, B.I., Gribetz, D. and Danziger, I.: The prognosis of ulcerative colitis with onset in childhood. *Ann. Int. Med.* 57, 582-597, 1962.
29. 森平浩平, 安原五郎, 佐藤雅彦: 潰瘍性大腸炎の癌化例について. *臨床外科*, 17, 215-217, 1962.

A case of ulcerative colitis in childhood

**Kazuhiko EHARA, Ikuo JOJA, Katashi SATO, Keiji HASHIMOTO,
Setsuo MORIMOTO, Toyosato TAMAI, Yasuo MORINO,
Katsuhiko SUGITA, Yoshio HIRAKI, Kaname AONO, Masatada TANABE
and Michio YAMAMOTO**

Department of Radiology, Okayama University Medical School

Okayama 700, Japan

(Director : Prof. M. Yamamoto)

Ulcerative colitis in childhood is a rare disease in Japan. A 10-year-old male child was admitted to Okayama University Hospital with a chief complaint of mucous and bloody diarrhea. He had been treated conservatively in another hospital, but the symptoms had not improved. Barium enema examination revealed, from the sigmoid to the transverse colon, abnormal barium coating, numerous small niches, disappearance of the network pattern, and faint spiculations along the margins. Endoscopy demonstrated slight edema, hyperemia, easy bleeding and some purulent secretion. Biopsy specimens showed infiltration of lymphocytes, plasma cells and eosinophilic leucocytes in the mucosa. We made a diagnosis of ulcerative colitis. The patient responded poorly to Salazopyrin and Penicillin, but improved considerably with corticosteroids.