

## 症例報告

### 結節性多発動脈炎を背景に発症した無石胆嚢炎の1例

中林 雄大\*<sup>1,3</sup>, 米田 政幸<sup>1</sup>, 村山 康利<sup>1</sup>  
 内山 清<sup>1</sup>, 溝畑 宏一<sup>2</sup>, 西川太一郎<sup>2</sup>  
 大田真紀代<sup>2</sup>, 尾藤 展克<sup>2</sup>, 飯沼 昌二<sup>2</sup>

<sup>1</sup>洛和会丸太町病院消化器センター外科

<sup>2</sup>洛和会丸太町病院消化器センター内科

<sup>3</sup>京都府立医科大学大学院医学研究科消化器外科学

### Acalculous Cholecystitis Due to Polyarteritis Nodosa: A Case Report

Yudai Nakabayashi<sup>1,3</sup>, Masayuki Yoneda<sup>1</sup>, Yasutoshi Murayama<sup>1</sup>,  
 Kiyoshi Uchiyama<sup>1</sup>, Hirokazu Mizohata<sup>2</sup>, Taichiro Nishikawa<sup>2</sup>,  
 Makiyo Ohta<sup>2</sup>, Nobukatsu Bito<sup>2</sup> and Shoji Inuma<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Department of Surgery, Gastroenterological Center, Rakuwakai Marutamachi Hospital

<sup>2</sup>Department of Internal Medicine, Gastroenterological Center, Rakuwakai Marutamachi Hospital

<sup>3</sup>Department of Digestive Surgery, Kyoto Prefectural University of Medicine  
 Graduate School of Medical Science

## 抄 録

結節性多発動脈炎を背景に発症した無石胆嚢炎を経験したので報告する。症例は71歳、男性。発熱と倦怠感を認め近医受診。その後褐色尿と肝障害が出現し、当院紹介となった。発熱とともに腹部、腰背部、両側小指および環指のしびれ、頭部痛、両側大腿部筋痛を認めた。血液検査と腹部CTで無石胆嚢炎が疑われた。入院で抗菌薬投与も症状改善を認めなかった。また骨盤部MRIで右精巣に炎症所見を認めた。臨床症状から結節性多発動脈炎による胆嚢炎が疑われ、腹腔鏡下胆嚢摘出術と併せて右精巣摘出術を施行した。術中所見では胆嚢壁は浮腫状で、右精巣動脈は腫大していた。病理結果では胆嚢、右精巣ともに結節性多発動脈炎で矛盾しない所見であった。術後は解熱とともに神経症状も軽快した。結節性多発動脈炎は直径約50~150 $\mu$ m程度の太さの動脈が炎症により血流障害を来すために全身に様々な症状を呈する全身性疾患である。今回我々の経験した症例より、局所の胆嚢摘出術と右精巣摘出術によって全身的な結節性多発動脈炎の病勢がコントロールされる可能性が示唆された。

キーワード：結節性多発動脈炎、胆嚢炎、腹腔鏡下胆嚢摘出術。

令和3年3月1日受付 令和3年5月20日受理

\*連絡先 中林雄大 〒602-8566 京都市上京区河原町通広小路上路梶井町465番地

n-yudai@koto.kpu-m.ac.jp

doi:10.32206/jkpum.130.07.451

## Abstract

We report a case of acalculous cholecystitis that occurred due to polyarteritis nodosa. A 71-year-old man visited a local doctor due to fever and fatigue and was referred to our hospital after elevated liver enzymes and hemosiderinuria were detected. His fever was accompanied by neurological symptoms of bilateral ulnar finger numbness, temporal headache, and bilateral thigh muscle pain. Acalculous cholecystitis was suspected based on a blood test and abdominal computed tomography. Despite administration of antibiotics, his fever did not subside. Pelvic magnetic resonance imaging revealed right testicular inflammation and swelling were observed. His cholecystitis was suspected to be caused by polyarteritis nodosa; therefore, he underwent laparoscopic cholecystectomy and right orchietomy. The gallbladder was edematous, and the right testicular arteries were swollen. The pathological findings indicated polyarteritis nodosa. After the surgery, his fever subsided and his neurological symptoms also improved. Based on this rare case, local cholecystectomy and right orchietomy can be suggested to control the progression of systemic polyarteritis nodosa.

**Key Words:** Polyarteritis nodosa, Cholecystitis, Laparoscopic cholecystectomy.

## 緒 言

結節性多発動脈炎 (polyarteritis nodosa: 以下, PN) は諸臓器に分布する中小動脈の壊死性炎症性疾患である。本症の血管病変は全身性であり, 障害部位によってさまざまな症状を呈するが, 胆嚢炎を合併することは稀である<sup>1)</sup>。今回我々は, PN を背景に発症した無石胆嚢炎に対して腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行し, 病勢コントロールを得た症例を経験したので報告する。

## 症 例

患者: 71 歳, 男性。

主訴: 発熱, 倦怠感。

家族歴: 特記事項無し。

既往歴: 高血圧症, 脂質異常症, 前立腺肥大症。

薬歴: アムロジピンベシル酸塩, イルベサルタン, フルバスタチンナトリウム, イコサペント酸エチル。

手術歴: なし。

現病歴: 発熱, 倦怠感を主訴に近医受診。その5日後に褐色尿と血液検査で肝機能障害を認め, 精査目的に当院消化器内科紹介受診。来院時発熱とともに腹部, 腰背部, 両側小指および環指のしびれ, 頭部痛, 両側大腿部筋痛を認めた。血液検査で炎症所見を認め, 腹部 CT で無

石胆嚢炎と診断された。入院後2週間の抗生剤治療を継続したが, 改善なく臨床症状より PN による胆嚢炎が疑われた。骨盤部 MRI で右精巣上体から右精索に動脈拡張を認め, 入院14病日に腹腔鏡下胆嚢摘出術と右精巣摘出術の方針となった。

現症: 身長 172.5 cm, 体重 68.3 kg。血圧 128/90 mmHg, 脈拍 88 回/分, 経皮的酸素飽和度 97% (室内気吸入時), 腋窩温 38.1°C。腹部は平坦・軟で Murphy 徴候陽性。Th9-L2 領域の腹部と背部にアロディニアと, C8 領域の両側環指小指と尺側手掌手背にしびれと感覚低下を認めた。両側頭部圧痛を認めない。両側大腿部に把握痛を認めた。右側優位に精巣上体から精索に圧痛を認めた。

入院時血液検査: WBC 10,500/ $\mu$ L, CRP 11.95 mg/dL, AST 69 U/L, ALT 106 U/L,  $\gamma$ -GT 385 U/L, ALP 878 U/L, T-Bil 2.2 mg/dL, D-Bil 1.8 mg/dL, BUN 11.0 mg/dL, Cre 1.05 mg/dL, HBs 抗原陰性, HBs 抗体 陰性。PR3-ANCA 陰性, MPO-ANCA 陰性。

腹部 CT 検査: 胆嚢は 4.1×2.2 cm で胆嚢壁浮腫を認めた。胆嚢粘膜側に高吸収域を認めた (Fig. 1) が, 明らかな結石は認めない。腹水は存在しない。

腹部 MRI 検査: 胆嚢壁浮腫を認めるが, 胆嚢内および総胆管内に結石は認めない。胆管狭窄は認めない (Fig. 2)。



Fig. 1: 腹部単純 CT で胆嚢は胆嚢壁浮腫と胆嚢粘膜側に高吸収域を認めた (白矢印).



Fig. 2: 腹部 MRI で胆嚢壁浮腫を認めるが、胆嚢内および総胆管内に結石は認めない。胆管狭窄は認めない。

骨盤部 MRI 検査: T2 強調画像で右側優位に精巣上体および精索内に高信号域を認める (Fig. 3).

以上より、結節性多発動脈炎の診断基準 (Table 1)<sup>2)</sup> によれば、主要項目の多発単神経炎、筋痛の 2 項目を満たし、確実に組織学的所見を得て確定診断とするため、腹腔鏡下胆嚢摘出術と右精巣摘出術を施行した。

手術所見: 臍部に 2 cm 縦切開し、開腹した後、12 mm XCEL ポート (Johnson & Johnson) を挿入し 10 mmHg で気腹を開始した。心窩部、右季肋下鎖骨中線上、右側腹部に 5 mm ポート (八光メディカル) を挿入した。胆のうは浮腫状であり急性期の像を呈していたが壊死や穿孔は認めなかった。腹腔鏡下に標本摘出した。右鼠径部に 4 cm の皮膚割線に沿って切開を置いた。外腹斜筋腱膜を切開し外鼠径輪の高さで精巣動静脈および精管を個別に結紮切離した。精巣を陰嚢より引き出して精巣導帯を切離し、標本を摘出した。

摘出標本: 胆嚢に腫瘍性病変を認めない。胆嚢内に血餅あり粘膜出血の疑い (Fig. 4)。右精巣に腫瘍性病変を認めない。右精巣上体および精索には血管拡張を認めた (Fig. 5)。

病理組織学的検査: 胆嚢へマトキシリン・エオシン (Hematoxylin-Eosin; 以下 HE) 染色標



Fig. 3: 骨盤部 MRI T2 強調画像で右側優位に精巣上体および精索内に高信号域を認める (黒矢印)。

本では、胆嚢壁漿膜下中小動脈に好中球浸潤を伴った fibrinoid necrosis を認め (Fig. 6a, 6b)、PN の像として矛盾しない。右精巣 HE 染色標本では、右精巣上体と精索結合組織内の中小動脈に好中球浸潤を伴った fibrinoid necrosis を認め (Fig. 7a, 7b)、PN の像として矛盾しない。いずれも悪性像を認めない。

術後経過: 術後 1 日目より解熱し、炎症所見とともに肝胆道系酵素も軽快した (Table 2)。同時に両側小指および環指のしびれと両側頭部

Table 1: 結節性多発動脈炎の診断基準. 難病情報センターホームページ「結節性多発動脈炎(指定難病 42)の診断・治療指針」より抜粋.

### (1)主要症候

1. 発熱 (38°C以上, 2週以上) と体重減少 (6カ月以内に6kg以上)
2. 高血圧
3. 急速に進行する腎不全, 腎梗塞
4. 脳出血, 脳梗塞
5. 心筋梗塞, 虚血性心疾患, 心膜炎, 心不全
6. 胸膜炎
7. 消化管出血, 腸梗塞
8. 多発性単神経炎
9. 皮下結節, 皮膚潰瘍, 壊疽, 紫斑
10. 多関節痛(炎), 筋痛(炎), 筋力低下

### (2)組織所見

中・小動脈のフィブリノイド壊死性血管炎の存在

### (3)血管造影所見

腹部大動脈分枝 (特に腎内小動脈) の多発小動脈瘤と狭窄・閉塞

### (4)診断基準

1. 確実 (Definite)
  - 主要症候2項目以上と組織所見のある例
2. 疑い (Probable)
  - (a) 主要症候2項目以上と血管造影所見の存在する例
  - (b) 主要症候のうち1.を含む6項目以上存在する例

痛, 両側大腿部筋痛は軽快した. 術後2日目に退院となった. 術後2か月経過したが, 発熱なく経過している. 他院膠原病内科に紹介され, 症状再燃時はステロイド投与の方針で経過観察となっている.

## 考 察

PNによる胆嚢障害に関しては, 剖検例の10~40%に胆嚢血管病変が存在すると報告されているが, 臨床的に胆嚢炎を来すことは稀とされている<sup>1)</sup>. PNは全身の中小動脈血管壁の

壊死性炎症性病変であり, 障害部位により様々な臨床症状を呈する. 障害臓器としては, 皮膚, 関節, 末梢神経, 消化管, 腎が高頻度であるとされる<sup>3)</sup>. 長見ら<sup>4)</sup>は, 本症の術前診断として, ①抗生剤投与によっても急性胆嚢炎症状を含む全身性炎症所見が改善しないこと, ②急性胆嚢炎症状の他にPNの診断基準に基づいた多彩な症状を認め, これらが急性胆嚢炎症状増悪に同調して増悪すること, ③画像診断で無石性胆嚢炎であることを挙げている. 本症例では, ①~③ともに認めた. 確定診断に至るには, 病理組



Fig. 4: 胆嚢切除標本. 胆嚢に腫瘍性病変なし. 胆嚢内に血餅あり  
 粘膜出血の疑い (白矢印).

\*オンライン版はカラー掲載

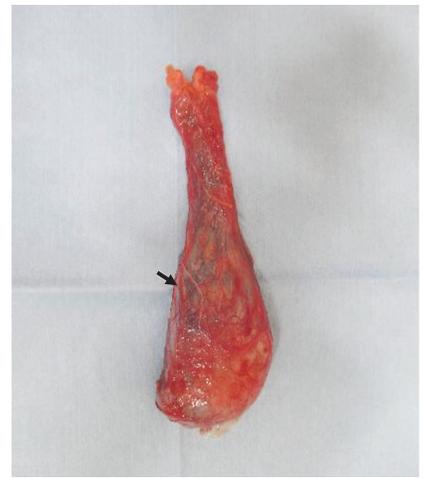


Fig. 5: 右精巣切除標本. 右精巣に腫瘍性病変なし. 精巣上部および精索には  
 血管拡張を認めた (黒矢印).

\*オンライン版はカラー掲載

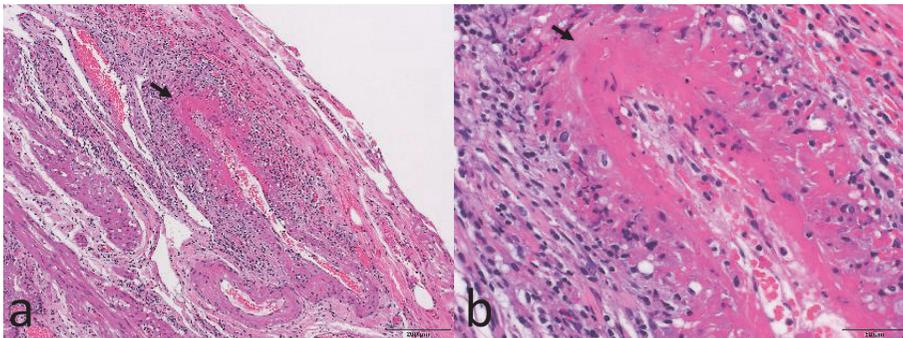


Fig. 6a, 6b: 胆嚢病理, HE 染色標本. 胆嚢壁漿膜下中小動脈に好中球浸潤を伴った fibrinoid  
 necrosis を認める (黒矢印).

\*オンライン版はカラー掲載

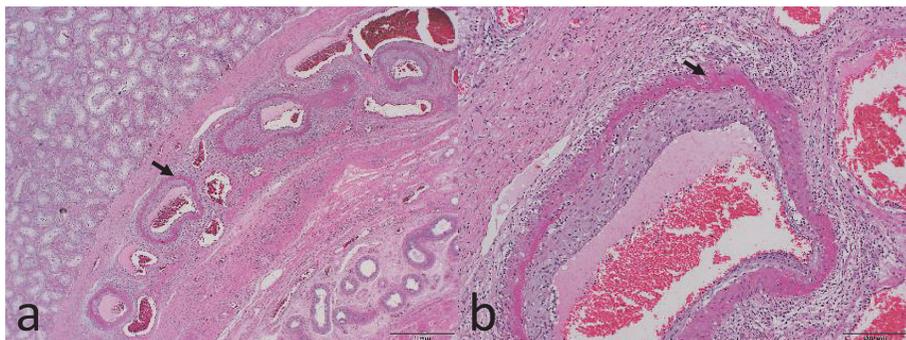
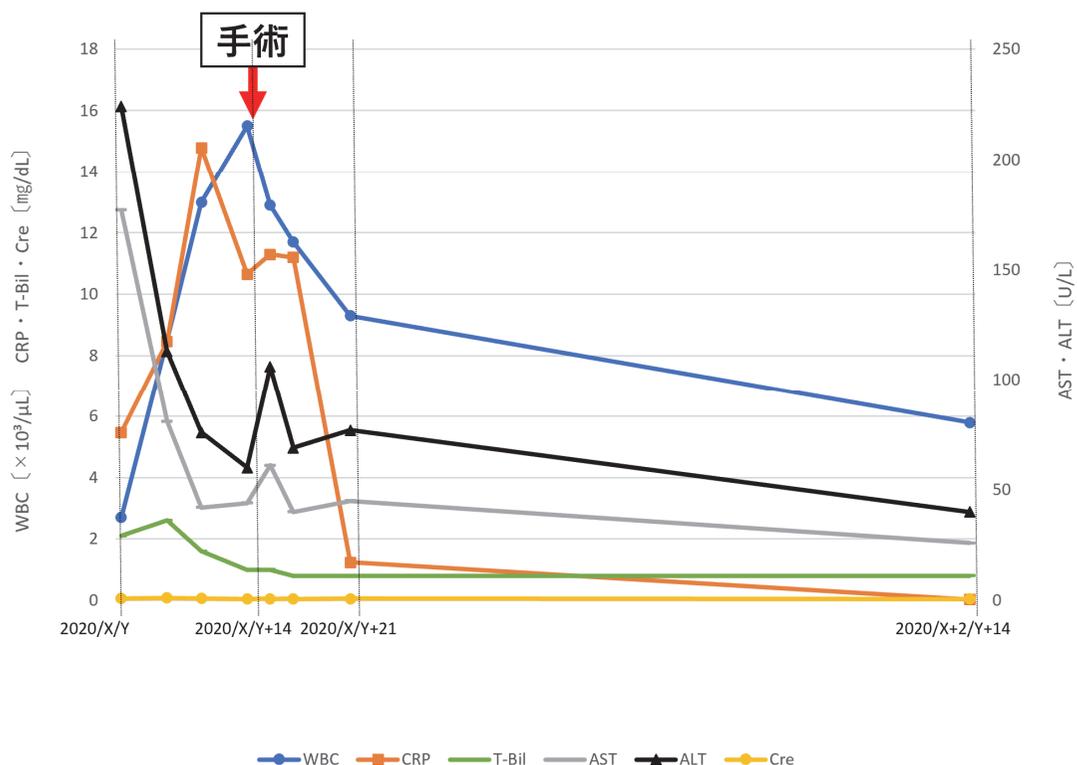


Fig. 7a, 7b: 右精巣病理, HE 染色標本. 右精巣上部と精索結合組織内の中小動脈に好中球浸  
 潤を伴った fibrinoid necrosis を認める (黒矢印).

\*オンライン版はカラー掲載

Table 2: 術前後血液検査データ推移.



\* オンライン版はカラー掲載

織学検査を提出するうえで病理医に本症を疑う臨床情報の提供が不可欠であると考えられる。本症例では、臨床症状と経過からPNによる胆嚢炎を疑い、加えて右精巣摘出術を合わせて施行することで病理所見から全身性疾患としてPNが背景に存在することを証明した。他に熱源がないか術前に十分な問診と全身の観察が重要と考える。PNの治療としては、ステロイドと細胞毒性薬剤、特にシクロフォスファミドの投与とされている<sup>5)</sup>。本症例では、胆嚢炎を来しており、ステロイド治療を開始後も改善ない場合に胆嚢摘出術が必要となるが、その場合に術後胆汁漏となり難治性瘻孔を合併する症例も報告されており<sup>6)</sup>、ステロイドを導入する前の胆嚢摘出術の方針とし、さらに確定診断をつけるために併せて右精巣摘出術を追加した。またPNがステロイドにIFN- $\alpha$ とラミブジン併用する治療で改善することから、B型肝炎ウイル

スが関与して発症するとされており<sup>7)8)</sup>、発生機序としてHBs抗原との免疫複合体による組織障害が疑われている<sup>9)</sup>。本症例ではB型肝炎の既往がなく、HBs抗原、HBs抗体検査はともに陰性であったことからB型肝炎ウイルスとの因果関係は否定的であった。一般的にはPNの発生機序は未だ不明とされている<sup>10)</sup>。PNは全身性PNと限局性PNに分類される<sup>11)</sup>が、本症例は多臓器に病変が存在し、発熱などの全身症状を伴うことから全身性PNと考えられる。本症例のように胆嚢や右精巣摘出を行ったことで、解熱とともに多発単神経炎や筋痛が改善されたことは非常に興味深い。本邦ではこのような報告がなく、通常胆嚢摘出後も全身炎症所見は改善せず、ステロイドなどの治療を開始後に軽快をみる<sup>12)</sup>。本症例で術後全身性PNの症状が改善した理由は定かでない。PNの活動期には血中免疫複合体が上昇する<sup>13)</sup>とされ、推察

の域を出ないが、免疫複合体や炎症性サイトカインが多く存在した胆嚢と右精巣の局所切除を行ったことで免疫複合体や炎症性サイトカインが相対的に減少したのかもしれない。そのため再燃する可能性は十分にあり、今後注意深い経過観察が必要と考えている。

## 結 語

結節性多発動脈炎を背景に発症した無石胆嚢

炎に対して腹腔鏡下胆嚢摘出術と右精巣摘出術を施行し、結節性多発動脈炎の病勢をコントロールできる可能性が示唆された。

開示すべき潜在的利益相反状態はない。

## 文 献

- 1) LiVolsi VA, Perzin KH, Porter M. Polyarteritis nodosa of the gallbladder, presenting as acute cholecystitis. *Gastroenterology*, 65: 115-123, 1973.
- 2) “結節性多発動脈炎（指定難病 42）の診断・治療指針”. 難病情報センター. <https://www.nanbyou.or.jp/entry/244>, (参照 2021-03-01).
- 3) Schumacher HR, Klippel JH, Robinson DR. *Primer on the Rheumatic Disease*. Arthritis Foundation, Atlanta GA, 9: 209-211, 1988.
- 4) 長見晴彦, 福田貴好, 田村勝洋, 中瀬 明, 三浦弘資. 多発性結節性動脈炎による急性胆嚢炎の一例. *日臨外医学会誌*, 51: 2240-2245, 1990.
- 5) Fauci AS, Haynes BF, Katz P. The spectrum of vasculitis, clinical, pathological, immunologic and therapeutic consideration. *Ann Intern Med*, 89: 660-676, 1978.
- 6) 奥村英雄, 徳毛誠樹, 岡 智, 大橋龍一郎. 結節性多発動脈炎による壊疽性胆嚢炎にて胆汁性腹膜炎を発症した1手術例. *日腹救済誌*, 27: 891-894, 2007.
- 7) Lau CF, Hui PK, Chan WM, Fung TT, Tung YM, Loo CK, Yip WC, Lam KM. Hepatitis B associated fulminant polyarteritis nodosa: successful treatment with pulse cyclophosphamide, prednisolone and lamivudine following emergency surgery. *Eur J Gastroenterol Hepatol*, 14: 563-566, 2002.
- 8) Erhard A, Sagir A, Guillemin L, Neuen-jacob E, Häussinger D. Successful treatment of hepatitis B virus associated polyarteritis nodosa with a combination of prednisolone, alpha-interferon and lamivudine. *J Hepatol*, 33: 677-683, 2000.
- 9) Nonogaki T, Aoki S, Yoshikawa K, Mitsui T. An Autopsy case of hepatitis B (HB) antigen-positive polyarteritis nodosa, with reference to immunopathological studies of vascular lesions. *Mod Rheumatol*, 10: 267-271. 2000.
- 10) 要 伸也. 代謝・免疫 結節性多発動脈炎・顕微鏡的多発血管炎・多発血管炎性肉芽腫症・好酸球性多発血管炎性肉芽腫症. *生体の科学*, 71: 482-483, 2020.
- 11) Moreland LW, Ball GV. Cutaneous Polyarteritis Nodosa. *Am J Med*, 88: 426-430, 1990.
- 12) 濱田貴幸, 小原則博, 金高賢悟, 栗津 諭, 奥平定之, 山田雅史, 前田潤平, 宮田昭海, 天野 実, 河合紀生子. 結節性多発性動脈炎による急性無石胆嚢炎の1例. *胆と膵*, 20: 255-258, 1999.
- 13) Libe ES, Hibravi H, Chia D. Correlation of disease activity in systemic necrotizing vasculitis with immune complex. *J Rheumatol*. 8: 258-265, 1981.