原 著

肛囲部 Paget 病患者における肛門管重層扁平上皮部切除術後の 直腸肛門機能の検討

九州大学大学院医学研究院臨床・腫瘍外科

石川 幹真 壬生 隆一 田中 雅夫

はじめに：肛囲部広範囲皮膚切除術は肛囲部 Paget 病に対する標準的治療の一つである。この術式では罹患部位により肛門の歯状線以下の重層扁平上皮が切除されることがあり、術後の重要な合併症の一つとして便失禁が挙げられる。しかし、この術式の直腸肛門機能に与える影響については報告されていない。今回、我々は肛囲部広範囲皮膚切除、分層植皮術（広範切除術）が直腸肛門機能に与える影響を問診と直腸肛門内圧検査を用いて評価し、術後排便障害との関連性を明らかにすることを目的とした。**対象と方法**：広範切除術を施行された肛囲部 Paget 病患者 9 例を対象に排便状態の問診と直腸肛門内圧検査を術前後に行い比較検討した。**結果**：9 例中 5 例に術後便失禁を認め、この 5 例のうち 4 例に植皮部の感染や壊死による肛門の狭窄・変形を生じていた。術後に発生した便失禁はこれら合併症を有した患者のみであった。直腸肛門内圧検査では、本術式の前後で有意な変化は認められず、植皮部合併症の有無、便失禁の有無で比較しても有意な差はなかった。**考察**：直腸肛門内圧検査による検討から、広範切除術は直腸肛門機能に対し有意な影響はないと考えられた。本術式後の便失禁は術後の肛門の狭窄や変形がその原因と考えられた。したがって、便失禁の予防には狭窄・変形の原因となる、感染や皮膚壊死といった合併症の予防が重要であると考えられた。

緒 言

肛囲部 Paget 病は 1893 年に Darier ら¹⁾によって初めて報告されたまれな上皮内癌である。本症は通常は会陰部の皮膚に広範囲に発生するが、肛門管内の重層扁平上皮へも浸潤することもある^{2)~4)}。したがって、肛門周囲の広範囲な皮膚切除と歯状線より外側の肛門管内の重層扁平上皮の sleeve 状切除を行い、同部への皮膚移植術（広範切除術）がしばしば必要である^{4)~8)}。

術後の排便機能の変化について、歯状線より口側の腸管切除術による影響は結腸肛門吻合術や回腸肛門吻合術により多くの研究がなされている^{9)~12)}。しかし、歯状線より外側の手術操作である肛囲部 Paget に対する広範切除術が直腸肛門機能に与える影響は明らかではない。

今回、我々は広範切除術という肛囲部 Paget 病の術式が直腸肛門機能に与える影響について、問診表と直腸肛門内圧検査を用いて検討した。

対象と方法

1990 年から 1996 年の間に当院において手術的治療を施行された肛囲部 Paget 病症例 9 例に対し直腸肛門内圧検査を施行した。男性 5 例、女性 4 例で平均年齢は 75.2 歳（66~90 歳）であった。皮膚病変の切除範囲は、病変部およびその周囲から生検を行いマッピングして決定した。すべての症例で肛門管内への浸潤は認めず、約 3cm のフリーマージンを付けての肛門周囲広範囲皮膚切除と、歯状線以下の肛門管重層扁平上皮の切除を行った。9 例中 7 例は肛門周囲に全周性の病変を有し全周性の切除を、他の 2 例は前方側にのみ病変が存在し半周性の切除を施行した。切除部には、両側鼠径部より採取した皮膚を用いて分層皮膚移植術を施行した。一連の手技のうち肛門管内の上

<2007 年 9 月 26 日受理>別刷請求先：石川 幹真
〒812-8582 福岡市東区馬出 3-1-1 九州大学大学院医学研究院臨床・腫瘍外科

皮切除術と移植部皮膚と歯状線肛門管上皮の縫合は大腸肛門外科医が担当し、他は皮膚科形成外科医が担当した。

周術期の管理として1例目から5例目までの前期症例には緩下剤による術前排便と中心静脈栄養による術後管理を行った。6例目以降の後期症例には腸管洗浄剤による術前腸管処置と中心静脈栄養に加え、アヘンチンキによる排便のコントロールを術後7～10日間行った。

8例は術前後に、1例は術後にのみ直腸肛門内圧検査を施行した。すべての症例において直腸肛門内圧検査施行時に排便状態に関する問診を実施した。問診の内容はThe American Society of Colon and Rectal Surgeons Fecal Incontinence Quality of Life Scale¹³⁾の項目に従い、Wexner's fecal incontinence quality of life score¹⁴⁾を参考として作成した。1日の排便回数、固形便・水様便・ガスに対する失禁の有無、失禁の期間と頻度、パッドの使用の有無、便意を耐えうるかどうか、失禁による社会生活制限の有無、便の硬さ、随伴する排尿障害の有無などを問診票の項目として用い、患者自身の評価を失禁の評価としてそのまま用いた。

直腸肛門内圧検査はすでに報告したinfused open tip法を用い、引き抜き法により施行した¹¹⁾。内圧検査では直腸静止圧、肛門管の長さ、肛門管静止圧、最大肛門管収縮圧、腹圧時直腸内最大上昇圧、直腸肛門反射、直腸最大耐容圧・量、直腸コンプライアンスを測定した。術後の内圧検査は肛門手術部の炎症が十分に軽快したと判断してから施行した(術後平均13.2か月)。

内圧検査の測定結果は平均±標準誤差で表記し、統計学的解析にはMann-Whitney U-testとFisher's exact testを用いた。

結 果

術後合併症

肛門管重層扁平上皮の全周性切除を伴う広範切除術を施行した症例のうち、3例に植皮部の感染を生じた。この3例と、術後に植皮部の壊死を生じた2例のあわせて5例に再植皮術が行われた。再植皮術を要した5例のうち4例に肛門の狭窄や変形が発生した。一方、半周性の肛門上皮切除術

を行った2例には植皮部の合併症はなかった。

術後の排便状況

アンケートに基づく術前後の排便状況、便失禁の有無をTable 1, 2に示す。今回の研究では、すべての症例で排便回数は術前後に変化を認めず、1日1～2回であった。直腸肛門内圧検査施行時点において下痢や排便困難を訴える症例はなかったが、4例において術後に半固形便および水様便の便失禁を、他の1例でガス失禁を認めた。これら5例のうち1例は90歳の男性で、術前から便失禁を訴えていた。他の4例はいずれも術後植皮部の感染に伴う肛門の狭窄や変形が起きた症例であった。術前より便失禁のある症例を除くと、術後に便失禁を生じたのは術後植皮部感染を伴う群5例中4例(80%)であり、合併症を伴わない群3例には便失禁を認めなかった。また、術前bowel preparationに緩下剤のみを用いていた前期5症例では4例に術後合併症を認め、そのうち3例に術後便失禁を生じていた。術前に腸管洗浄剤を用い、術後の管理にアヘンチンキを採用した後期の症例4例では、術前から便失禁のあった1例を除けば術後合併症と術後の便失禁は1例に認めたのみであった。半周性肛門管扁平上皮切除を伴う広範切除術を受けた症例には便失禁はなかった。

直腸肛門内圧検査

術前後の直腸肛門内圧検査の比較をTable 3に示す。測定値には術前後に有意な変化はみられなかった。しかしながら、maximum squeeze pressureは 34.3 ± 3.9 から 22.9 ± 2.3 に低下していた($p=0.14$)。また、術後の内圧検査結果において植皮部合併症の有無による比較(Table 4)でも、術後便失禁の有無による比較(Table 5)においても有意な差は認めなかった。

考 察

直腸癌に対する低位前方切除後の直腸肛門機能の検討から、術後に頻便と便失禁を生じる最も大きな因子は直腸のreservoir capacityの減少であることが明らかにされている^{11)15)～19)}。また、他の報告では直腸肛門反射の消失も便失禁の原因の一つと考えられている^{20)～22)}。これらの所見からは直腸のreservoir capacityと内肛門括約筋の機能温存

Table 1 Preoperative status of defecation and continence in patients with perianal Paget's disease

Patients	Frequency of bowel habit	Fecal incontinence	Use of pad	Change in life style	Fecal incontinence score*
1	—	—	—	—	—
2	1/day	none	none	none	0
3	1/day	none	none	none	0
4	1-2/day	none	none	none	0
5	1-2/day	none	none	none	0
6	1-2/day	solid, watery 2-3/ week	daily	+	10
7	1-2/day	none	none	none	0
8	1-2/day	none	none	none	0
9	1-2/day	none	none	none	0

*: Wexner's fecal incontinence quality of life score¹⁴⁾**Table 2** Postoperative status of defecation and continence in patients with perianal Paget's disease

Patients	Postoperative complications	Frequency of bowel habit	Fecal incontinence	Use of pad	Change in life style	Fecal incontinence score*
1	none	1-2/day	none	none	none	0
2	implanted skin necrosis/deformity	1-2/day	semi-solid, watery, gas 1-2/week	nightly 2-3/ week	none	6
3	infection/deformity	1-2/day	watery, gas 1-2/week	none	none	4
4	infection	1/day	none	none	none	0
5	infection/deformity	1-2/day	semi-solid, watery 1-2/week	none	none	2
6	none	1-2/day	solid, watery 2-3/week	daily	+	10
7	none	1-2/day	none	none	none	0
8	implanted skin necrosis/deformity	1-2/day	gas 1-2/week	none	none	2
9	none	1-2/day	none	none	none	0

*: Wexner's fecal incontinence quality of life score¹⁴⁾

が便失禁の予防には大切と考えられる。一方で、keyhole deformity に代表される肛門の構築の変形も排便状態に影響を与える大きな因子であるとされている²³⁾。

肛門部 Paget 病患者の術後にも便失禁を生じることがあり、医学中央雑誌にて2002年から2007年までの期間で「乳房外パジェット病」「肛門機能」をキーワードとして検索すると7例の症例報告が検索された。しかしながら、いずれも直腸肛門機能の変化や便失禁の原因について検討を加えたものではなかった。また、Medlineにて1980年から2007年までの期間で「extramammary

Paget's disease」「anorectal function」のキーワードで検索しても文献の報告はなかった。

今回、肛門部 Paget 病患者に対する術後排便機能の検討では、直腸肛門内圧検査のうえで術前後の有意な変化は認められなかった。また、術後便失禁の有無で比較した術後の直腸肛門内圧検査値も有意差はなかった。Maximum squeeze pressure が術後に低下する傾向がうかがわれた ($p=0.14$) が、この傾向は有意なものではなかった。今回の検討では症例数が9例であり、有意差が得られなかった原因として症例数の不足が考えられる。このことから、広範切除術が外肛門括約筋機

Table 3 Results of anorectal manometry before and after surgery in Patients with perianal Paget's disease

	Preoperative values (n = 8)	Postoperative values (n = 9)
Rectal resting pressure (mmHg)	3.0 ± 0.8	3.4 ± 0.7
Length of the anal canal (cm)	3.5 ± 0.3	3.0 ± 0.5
Resting pressure of the anal canal (mmHg)	48.4 ± 9.8	46.1 ± 10.2
Maximum squeeze pressure (mmHg)	34.3 ± 3.9	22.9 ± 2.3*
Maximum pressure elevation of the rectum during straining (mmHg)	41.3 ± 5.6	47.2 ± 8.0
Rectal volume initiating continuous desire to defecate (ml)	97.0 ± 23.6	102.1 ± 21.2
Rectal pressure initiating continuous desire to defecate (mmHg)	48.4 ± 7.6	62.0 ± 6.1
Maximum tolerable volume (ml)	158.8 ± 27.9	150.0 ± 20.9
Maximum tolerable pressure (mmHg)	62.5 ± 7.7	78.6 ± 6.3
Rectal compliance (ml/mmHg)	4.4 ± 0.9	4.8 ± 0.3

(*: p = 0.14)

Table 4 Results of postoperative anorectal manometry in patients with and without postoperative complications

	With complications (n = 5)	Without complications (n = 3)
Rectal resting pressure (mmHg)	4.5 ± 1.0	3.0 ± 1.0
Length of the anal canal (cm)	3.0 ± 0.8	3.0 ± 0.4
Resting pressure of the anal canal (mmHg)	53.5 ± 15.2	39.8 ± 10.1
Maximum squeeze pressure (mmHg)	23.0 ± 3.7	23.3 ± 2.2
Maximum pressure elevation of the rectum during straining (mmHg)	55.5 ± 9.6	38.5 ± 9.2
Rectal volume initiating continuous desire to defecate (ml)	110.0 ± 32.4	91.7 ± 30.9
Rectal pressure initiating continuous desire to defecate (mmHg)	57.5 ± 6.9	68.0 ± 11.4
Maximum tolerable volume (ml)	152.5 ± 33.5	135.0 ± 22.2
Maximum tolerable pressure (mmHg)	70.5 ± 6.2	82.0 ± 10.1
Rectal compliance (ml/mmHg)	4.6 ± 0.4	4.8 ± 0.3

能に与える影響については、今後症例数を増やしての検討が必要と考えられる。しかしながら、便失禁の有無による検討では maximum squeeze pressure の術前後の値に差は認められず、外肛門括約筋機能への影響が直接排便機能に影響を与えるものではないと考えられる。したがって、我々の研究によって、肛門部 Paget 病に施行される広範切除術は直腸肛門検査のうえでは排便機能に重大な影響を及ぼさない程度であると考えられた。

一方で、内圧検査上は差異を認めないにもか

わらず、術後の植皮部感染や皮膚壊死などの合併症により肛門の構築に狭窄・変形を生じた症例には高率に術後便失禁が発生している。また、より強力な術前 bowel preparation と術後排便のコントロールを導入した後期の症例では合併症の頻度が低下し、incontinence score の術前後の変化も少ない傾向にあった。この事実は、本術式後の便失禁が手術手技自体による直腸肛門機能の変化によるものではなく、合併症に伴う肛門管の狭窄や変形が原因であることを強く示唆している。した

Table 5 Results of postoperative anorectal manometry in patients with and without postoperative incontinence

	With incontinence (n = 5)	Without incontinence (n = 3)
Rectal resting pressure (mmHg)	4.0 ± 1.2	3.0 ± 1.0
Length of the anal canal (cm)	2.0 ± 0.6	3.7 ± 0.5
Resting pressure of the anal canal (mmHg)	38.7 ± 10.7	59.2 ± 10.1
Maximum squeeze pressure (mmHg)	18.7 ± 4.1	26.0 ± 1.4
Maximum pressure elevation of the rectum during straining (mmHg)	44.0 ± 3.5	50.0 ± 14.6
Rectal volume initiating continuous desire to defecate (ml)	98.9 ± 30.0	108.8 ± 33.2
Rectal pressure initiating continuous desire to defecate (mmHg)	59.3 ± 7.4	64.0 ± 9.9
Maximum tolerable volume (ml)	150.0 ± 25.2	150.0 ± 34.2
Maximum tolerable pressure (mmHg)	78.0 ± 10.4	79.0 ± 9.1
Rectal compliance (ml/mmHg)	4.7 ± 0.3	4.7 ± 0.4

がって、本術式での術後の排便機能を保つためには、十分な術前の腸管洗浄と適切な術後の排便コントロールによって、肛門構築の変形の原因と考えられる植皮部の感染や壊死といった術後の局所合併症を予防することが重要であると考えられた。

文 献

- 1) Darier J, Couilland P : Sur un de maladie de Paget de la region perineo-anale et scrotale. *Ann Dermatol Syph* **4** : 25—31, 1893
- 2) Grodsky L : Extramammary Paget's disease of the perianal region. *Dis Colon Rectum* **3** : 502—510, 1960
- 3) Jones RE Jr, Austin C, Ackerman AB : Extramammary Paget's disease : a critical reexamination. *Am J Dermatopathol* **1** : 101—132, 1979
- 4) Beck DE, Fazio VW : Perianal Paget's disease. *Dis Colon Rectum* **30** : 263—266, 1987
- 5) Shutze WP, Gleysteen JJ : Perianal Paget's disease. Classification and review of management : report of two cases. *Dis Colon Rectum* **33** : 502—507, 1990
- 6) Goldman S, Ihre T, Lagerstedt U et al : Perianal Paget's disease : report of five cases. *Int J Colorectal Dis* **7** : 167—169, 1992
- 7) Kavlie H, Stevenson JK, Gould VE : Perianal Paget's disease. *Am Surg* **37** : 485—489, 1971
- 8) Shakey FE, Clarke RL, Gray GF : Perianal Paget's disease : report of two cases. *Dis Colon Rectum* **18** : 245—248, 1975
- 9) Neal DE, Williams NS, Johnston D : Rectal, bladder and sexual function after mucosal proctectomy with and without a pelvic reservoir for colitis and polyposis. *Br J Surg* **69** : 599—604, 1982
- 10) Nakahara S, Itoh H, Mibu R et al : Anorectal function after high sacrectomy with bilaterai resection of S2-S5 nerves. repot of a case. *Dis Colon Rectum* **29** : 271—274, 1986
- 11) Nakahara S, Itoh H, Mibu R et al : Clinical and manometric evaluation of anorectal function following low anterior resection with low anastomotic line using an EEATM stapler for rectal cancer. *Dis Colon Rectum* **31** : 762—766, 1988
- 12) Mibu R, Itoh H, Nakahara S et al : Manometric and hidtologic assessment following proctoclectomy and straight enteroanal anastomosis in canines. *Eur Surg Res* **23** : 341—346, 1991
- 13) Rockwood TH, Church JM, Fleshman JW et al : Fecal incontinence quality of life scale : quality of life instrument for patients with fecal incontinence. *Dis Colon Rectum* **36** : 77—97, 2000
- 14) Rockwood TH, Church JM, Fleshman JW et al : Patient and surgeon ranking of the severity of symptoms associated with fecal incontinence. *Dis Colon Rectum* **42** : 1525—1532, 1999
- 15) Suzuki H, Matsumoto K, Amano S et al : Anorectal pressure and rectal compliance after low anterior resection. *Br J Surg* **67** : 655—657, 1980
- 16) Keighley MRB, Matheson D : Functional results of rectal excision and endo-anal anastomosis. *Br J Surg* **67** : 757—761, 1980
- 17) Pappalardo G, Toccageli S, Dionisio P et al : Preoperative and postoperative evaluation by manometric study of the anal sphincter after coloanal anastomosis for carcinoma. *Dis Colon Rectum* **31** : 119—122, 1988
- 18) Batignani G, Monaci I, Ficari F et al : What af-

- fects continence after anterior resection of the rectum. *Dis Colon Rectum* **34** : 329—335, 1991
- 19) Lewis WG, Holdsworth PJ, Stephenson BM et al : Role of the rectum in the physiological and clinical results of coloanal and colorectal anastomosis after anterior resection for rectal carcinoma. *Br J Surg* **79** : 1082—1086, 1992
- 20) Lane RHS, Parks AG : Function of the anal sphincters following colo-anal anastomosis. *Br J Surg* **64** : 596—599, 1977
- 21) Read MG, Read NW : Role of anorectal sensation in preserving continence. *Gut* **23** : 345—347, 1997
- 22) O'Riordain MG, Molly RG, Gillen P et al : Rectoanal inhibitory reflex following low stapled anterior resection of the rectum. *Dis Colon Rectum* **35** : 874—878, 1992
- 23) Gordon PH : Anal incontinence. Edited by Gordon PH, Nivatvongs S. Principles and practice of surgery for the colon, rectum, and anus. Quality medical publishing, St Louis, 1992, p337—359

Anorectal Function after Wide Local Excision of the Perianal Skin and Anal Squamous Epithelium in Patients with Perianal Paget's Disease

Mikimasa Ishikawa, Ryuichi Mibu and Masao Tanaka

Department of Surgery and Oncology, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University

Background : Wide local excision of the perianal skin and anal squamous epithelium is often used to treat perianal Paget's disease, but the effect of this procedure on anorectal functions has not been sufficiently studied.

Objective : We clarified changes in anorectal function after wide local excision of the perianal skin. **Subjects** : Subjects were 9 patients with perianal Paget's disease. **Methods** : We distributed questionnaires on bowel habits and anorectal manometric studies before and after surgery. **Results** : Five of the 9 suffered from postoperative fecal incontinence. Four of these 5 had stenosis and/or deformity of the anus caused by local perianal complications such as infection and necrosis of implanted skin. Postoperative incontinence occurred only in patients with postoperative perianal complications. No differences were noted between pre- and postoperative manometric results. No differences were seen between manometric values in those with and without postoperative perianal complications or with and without postoperative incontinence. **Conclusion** : Wide local excision of the perianal skin and anal squamous epithelium did not affect anorectal function. Postoperative incontinence may be due to anal configuration deformity following perianal complications. Prevention of local postoperative complications such as infection and necrosis of the implanted skin thus is important for maintaining fecal continence.

Key words : anus, extramammary Paget's disease, anorectal manometry, fecal incontinence

[*Jpn J Gastroenterol Surg* **41** : 277—282, 2008]

Reprint requests : Mikimasa Ishikawa Department of Surgery and Oncology, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University
3-1-1 Maidashi, Higashi-ku, Fukuoka, 812-8582 JAPAN

Accepted : September 26, 2007