症 例

転移性痔瘻癌の1例

東京都立墨東病院外科

上 田 和 光 梅 北 信 孝 松 峯 敬 夫

症例は66歳の女性。1989年の5月にS状結腸癌(adenocarcinoma),胆石症の診断にて,S状結腸切除術(R₃),胆摘術を施行。術後経過は良好であったが,退院後4カ月目に,40年来の痔瘻の皮膚開口部に大豆大の腫瘤が2コ出現し,徐々に増大,その1カ月後には,小児手拳大となった。腫瘤のほぼ中央部に2次口が見られ,造影にて,肛門管に通じる瘻孔所見が得られ,生検の結果はadenocarcinomaであった。また,精査にて,直腸・肛門管粘膜に悪性所見はなく,前回手術時の吻合部にも,再発は見られなかった。以上より,痔瘻に併発した肛門癌の診断にて,腹会陰式直腸切断術(R₃),腔後壁合併切除を施行した。痔瘻から発癌したことを組織学的に証明することは困難な場合が多く,本症例はその組織像がS状結腸癌と同じものであったため,原発よりもむしろ転移が考えられた。痔瘻への転移例は本邦ではいまだ見られず,稀な1例であった。

索引用語: 転移性痔瘻癌, 痔瘻癌

はじめに

長期にわたる難治性の痔瘻に癌が合併することは,1931年, Rosser¹⁾の報告以来,数多くみられ,よく知られている。しかし,他の部位の大腸癌が痔瘻に管腔内転移したと考えられる報告は稀で,本邦での報告例は,われわれの調べた範囲ではない。

最近著者らは,S状結腸癌術後早期に,痔瘻より発症した肛門癌を経験し,臨床経過からS状結腸癌の痔瘻への管腔内転移が疑われたので,若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 66歳, 女性。

主訴: 肛門部腫瘤。

家族歴: 兄が胃癌で死亡。

既往歴: 6歳時, 脊椎側弯症。15歳時, 虫垂切除術。22歳時, 痔瘻発症。25歳時, 右肺結核にて気胸療法を受けている。

現病歴: 22歳頃より痔瘻が発症し,以後,寛解・増悪を繰り返していた。手術の既往はない。1989年1月,下血が出現したが,放置していた。4月下旬,イレウス症状となり緊急入院。精査にて,S状結腸癌,および胆石症と診断された。入院時の肛門部所見は,3時方向に痔瘻の2次口が見られたが,腫瘤は認められな

かった。1989年5月2日,S状結腸切除術(R₃),胆摘術を試行した。このときの術中および病理所見は,ss, n₀p₀h₀, well differentiated adenocarcinomaであった(図1)。

術後経過は良好にて,第24病日に退院となり,以後外来でKrestin, Tegafurを投与し経過観察となった。しかし,1989年9月下旬(術後約5カ月)になり,痔瘻の皮膚開口部に大豆大の腫瘤が2コ見られるようになった。その1カ月後には易出血性の小児手拳大の腫瘤に増大し,悪性が強く疑われたため,精査・治療目的にて,11月17日入院となった。

入院時所見: 体格は中等度,栄養状態は良好,結膜

図1 S状結腸癌の組織像(H.E. ×34)

1990年5月30日受付 1991年3月22日採用

図2 肛門部局所所見とそのシェーマ

には貧血や黄疸はなく、単径リンパ節を含め、表在リンパ節の腫脹も認められなかった。胸部聴診所見は、右肺野に呼吸音の低下が認められたが、気胸療法によるものと考えられた。腹部所見では、前回手術の瘢痕が見られたが、圧痛はなく、また腫瘍も触知せず。肛門部は、3時の方向に、小児手拳大、凹凸不整、易出血性の腫瘍を認め、その周囲の皮膚は、13×6cmの広さで発赤が見られた。腫瘍中心の陥凹部（矢印）よりゾンを挿入すると、容易に肛門管に通じた。直腸内指診では、直腸粘膜に腫瘍、硬結は触知しなかった（図2）。

入院時検査所見：血液・生化学検査は、正常範囲内であった。腫瘍マーカーについては、carcinoembryonic antigen が57ng/ml と軽度上昇がみられた。

瘻孔造影検査では、肛門部腫瘍の中央部2次口と思われる部位より造影剤を注入すると、肛門管へ続くほぼ直線上の瘻孔像が得られた。

注腸造影検査では、直腸S状部にφ6mmの山田II型ポリープがみられたが、前回手術時の吻合部を含め、他に異常所見を認めなかった（図3）。

大腸内視鏡検査では、1次口は確認できなかった。また、直腸S状部のポリープは生検の結果 tubular adenoma であった。他は注腸造影所見と同様、異常を認めなかった。

Computed tomography では、腫瘍が皮膚より突出しているが、骨盤腔内に腫瘍やリンパ節の腫大はなく、また、S状結腸癌の局所再発所見も見られなかった。

肛門部腫瘍の生検を施行したところ、比較的管腔形成の明瞭な adenocarcinoma の結果を得た。

以上より、痔瘻に併発した肛門癌の診断にて、1989年11月29日に肛門周囲皮膚の発赤部を含め、腹会陰式直腸切断術(R₃)、腔後壁合併切除を施行した。術中所

図3 注腸造影所見：直腸に悪性所見はみられない。

見は N₀A₀P₀H₀ であった。

切除標本の肉眼所見：腫瘍は6×4×2cm大で、皮膚より隆起しており、中央部の陥凹部より、ゾンを挿入すると、anal crypt に通じる瘻孔が確認された。しかし、anal crypt 周囲の粘膜面に異常はみられなかった（図4）。

切除標本の病理学的所見：anal crypt 付近には、強い炎症所見を伴った瘻管がみられたが、癌は認められなかった。しかし、皮膚に近づくにつれ癌の占める割合が多くなっており、この癌の組織所見は前回のS状結腸癌と同一であった（図5）。

術後経過は良好で、現在患者は外来にて経過観察中

図4 切除標本の肉眼所見：腫瘍中央の陥凹部より anal crypt に通じる瘻孔が認められた。

図5 切除標本の組織像 (H.E. ×17)：S 状結腸癌と同じ well differentiated adenocarcinoma であった。

であるが、再発所見は見られていない。

考 察

肛門腺は anal crypt に開口する小腺組織であり、肛門の炎症性疾患の原発個所として重要である。anal crypt から侵入した汚物が、肛門腺へと進み、そこに炎症を起こして、痔瘻が発生すると言われている。それが長い間炎症を繰り返して治癒しない場合、発癌することがある²⁾。その発生母地として、肛門腺や、瘻孔内に侵入した anal crypt 周囲の直腸粘膜、あるいは、2 次口周囲の瘢痕組織から発生すると考えられている。

痔瘻と癌の合併については 3 通りの場合が考えられ、1 つは痔瘻から癌が発生した、いわゆる痔瘻癌、2 つ目は癌の存在により痔瘻が形成された場合、3 つ目はこの 2 つが偶然に併存している、のいずれかである。

Rosser¹⁾, Skir³⁾, McIntyre ら⁴⁾は、痔瘻の臨床経過

表 1 痔瘻癌の診断基準

(Rosser, Skir, McIntyre ら)

- 1) 痔瘻が長期にわたって炎症を繰り返している (少くとも10年以上)。
- 2) 痔瘻の部分に疼痛や硬結が起ってくる。
- 3) mucin 様分泌をきたす。
- 4) 原発性の癌が直腸肛門のほかの部分に存在しない。
- 5) 瘻管開口部が肛門管または crypt にある。

表 2 痔瘻癌の組織型

(本邦報告例, 117例)

1) 粘 液 癌	55.6%
2) 腺 癌	34.2%
3) 扁平上皮癌	6.0%
4) 印環細胞癌	1.7%
5) 腺扁平上皮癌	1.7%
6) 類基底細胞癌	0.8%

および、症状に重点をおいて、痔瘻癌の診断基準を示している (表 1)。

痔瘻癌の全痔瘻に対する頻度は 0.1~0.3% と言われ、本邦報告例は 1981 年隅越ら⁵⁾が 95 例 (5 年以上痔瘻が存在) を集計して以来、著者が調べた限りでは、現在まで 117 例に達している。年齢は 50 歳台が最多であり、40 歳台・30 歳台がそれに続く。男女比は約 4 : 1 である。その組織型は過半数が粘液癌であり、腺癌を合わせると約 90% を占めている (表 2)。

本症は、40 年来の痔瘻が存在し、瘻孔開口部も肛門管 (anal crypt) に存在する。直腸肛門には他の原発癌は存在せず、mucin 様分泌のないこと以外は表 1 の診断基準を満たす。しかし、転移と考えられる所見として、1) slow glowing な痔瘻癌に比べ、術後早期に発症し、急速に増大している点、2) 組織型の多くが粘液癌であるが、先行の S 状結腸癌と同じ、well differentiated adenocarcinoma である点、3) 2 次口付近にのみ adenocarcinoma が限局し、anal crypt 周辺には見られない点を考慮すれば、もちろん異時性多発癌の可能性は否定できないが、原発性痔瘻癌よりも、S 状結腸癌の痔瘻への管腔内転移が強く疑われる。

大腸癌の痔瘻への転移例は本邦では報告されていないが、欧米では少数ながら見られる。Guiss⁶⁾の報告では、痔瘻の診断で瘻管摘除し、この瘻管に adenocarcinoma が見られ、精査にて S 状結腸癌が発見された。この癌細胞が 2 次的に痔瘻内に運ばれて、implantation され、腺癌が起こると述べている。Rollinson ら⁷⁾

は、20年来の痔瘻に発症した、S 状結腸癌の転移例を報告しており、転移と判断した根拠は、その組織型が同じ adenocarcinoma であったことによる。

痔瘻癌は肛門癌のなかでも特異的なもので、管外性に発育し、上方向転移が見られず⁸⁾、下方向の転移率も低い。しかも、発育が遅く、悪性度が低いので、比較的予後がよい。隅越ら⁹⁾の報告では、5 年生存率は60%であり、他にも予後が良い報告例が多い⁹⁾。

結 語

S 状結腸癌術後 5 カ月目に切除しえた痔瘻癌の 1 例を報告した。本症例は、S 状結腸癌と同じ組織像であり、発育速度も、slow growing な痔瘻癌と比べ、早いことより、S 状結腸癌の瘻管への管腔内転移によるものと考えられた。

転移性痔瘻癌の報告例は、欧米では少数見られるが、本邦ではいまだ無く、本症例が 1 例目であった。

痔瘻癌が存在するときは、大腸の検査も施行し、また、大腸癌に痔瘻が合併しているときは、瘻管切除も併施すべきと考える。

稿を終えるに望み、御懇切なるご指導をいただきました都立墨東病院病理、鈴木不二彦博士、青木幹雄博士に深甚なる謝意を捧げます。

本症例は、平成 2 年 2 月第 208 回日本消化器病学会関東地方会支部例会で報告したものである。

文 献

- 1) Rosser C: The etiology of anal cancer. *Am J Surg* 11: 328—333, 1931
- 2) 跡部安則, 金光徹二, 荒井光広他: 痔瘻より発生したと思われる粘液癌の 1 例, *日消外会誌* 20: 820—823, 1987
- 3) Skir I: Mucinous carcinoma associated with fistulas of long-standing. *Am j Surg* 75: 285—289, 1948
- 4) McIntyre JM: Carcinoma associated with fistula in-ano. *Am J Surg* 84: 610—613, 1952
- 5) 隅越幸男, 岡田光生, 岩垂純一他: 痔瘻癌, *日本大腸肛門病会誌* 34: 467—472, 1981
- 6) Guiss RL: The implantation of cancer cells within a fistula in ano. *Surg* 36: 136—139, 1954
- 7) Rollinson PD, Dundas SAC: Adenocarcinoma of sigmoid colon seeding into pre-existing fistula in ano. *Br J Surg* 71: 664—665, 1984
- 8) Rundle FF, Hales JB: Mucoid carcinoma supervening of fistula in ano, its surgical pathology and treatment. *Ann Surg* 137: 215—219, 1953
- 9) 深沢 宏, 粕川剛義, 鎌田重康他: 痔瘻を伴う肛門部癌について, *日本大腸肛門病会誌* 31: 586—592, 1978

A CASE OF METASTATIC CARCINOMA FOUND AT AN ANAL FISTULA

Kazumitsu UEDA, Nobutaka UMEKITA and Takao MATSUMINE

Department of Surgery, Tokyo Metropolitan Bokuto Hospital

In May 1989 a 66-year-old female had undergone sigmoidectomy (R3) and cholecystectomy under a diagnosis of adenocarcinoma of the sigmoid colon with cholelithiasis, and postoperative course was uneventful. Four months after surgery, however, 2 tumors of soybean size appeared at the opening on the cutaneous surface of anal fistula, from which she had been suffering for over 40 years, and one more month after that, the tumors gradually enlarged to be of child-fist size. The secondary opening was observed around the center of the tumors. Roentgenography revealed some findings indicating a fistula led to the anal canal. Biopsy showed adenocarcinoma. Strict examinations revealed no malignancy in the rectal and anal canal mucosa, nor recurrence in the anastomosis at the former operation. Accordingly the patient was diagnosed as having anal carcinoma associated with anal fistula, abdominoperineal excision of rectum (R3) and associated resection of vaginal posterior wall being performed.

Carcinogenesis from an anal fistula is often difficult to be demonstrated histologically. In this case, as its histologic features were similar to those of sigmoid colon carcinoma, we considered it as metastasized carcinoma rather than primary one. This case is so rare that no metastasis to an anal fistula has not been reported in Japan.