症 例

直腸腔中隔原発子宮内膜症癌化の1例

呉共済病院外科

佐々木 秀 三 好 信 和 平 田 敏 明

丸 山 泰 司 中 井 隼 雄

同 臨床病理科

佐々木 なおみ 谷 山 清 己

症例は49歳女性。下血を主訴に入院。大腸内視鏡検査にて直腸に潰瘍を伴う腫瘍を認め、潰瘍底からの生検で扁平上皮癌と診断された。CT, MRI では、腫瘍は直腸腔中隔に存在し、多発肝転移を認めた。直腸切断術および子宮両付属器摘出術が施行されたが既に腹膜播種も伴っていた。病理組織学的所見では、扁平上皮癌、漿液性腺癌、明細胞癌などの多彩な組織像が混在し、これらと直腸腔中隔内に見られた良性の子宮内膜症組織との間に移行が認められたため子宮内膜症の癌化例と診断された。本症例は癌性腹膜炎と肝転移の急激な増悪のため、術後2カ月で死亡した。卵巣外原発の子宮内膜症の癌化は稀であり、自験例はわれわれの検索し得た限りでは本邦で3例目の報告である。

索引用語：子宮内膜症，癌化，直腸腔中隔

緒 言

子宮内膜症は成熟期女性においては比較的一般的な疾患であるが、その癌化例は卵巣外原発では稀であり、本邦では自験例を含め3例の報告を見るのみである。今回、直腸腔中隔に原発した子宮内膜症の癌化例を経験したので報告する。

症 例

患者：49歳，女性。

主訴：下血。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成3年5月より子宮筋腫を指摘され、当院産婦人科にて経過観察中であつた。この間、年一回子宮頸部腔部の細胞診検査を施行されるもすべてclass Iであつた。月経周期は不順で月経困難症を認めていた。

平成6年6月中旬より下血が出現し、近医を受診。下部消化管内視鏡検査にて直腸腫瘍が認められたが、生検で扁平上皮癌と診断されたため子宮あるいは卵巣原発の腫瘍を疑われ、平成6年7月2日、当院産婦人科に紹介入院となった。

表1 入院時検査成績

末梢血		BUN	9.1 mg/dl
Hb	10.1 g/dl	Cr	0.6 mg/dl
RBC	$332 \times 10^4 / \text{mm}^3$	腫瘍マーカー	
WBC	$6,920 / \text{mm}^3$	CEA	0.5 ng/ml
Hct	32.0 %	CA19-9	840.0 IU/ml
Plt	$30.5 \times 10^4 / \text{mm}^3$	CA125	2,848.0 ng/ml
血清生化学		SCC	2.4 IU/ml
T-Bil	0.3 mg/dl	検尿	
GOT	12 IU	異常なし	
GPT	11 IU	検便	
LDH	706 IU	ヒト Hb	(+)
TP	7.6 g/dl		

入院時現症：栄養やや不良，眼球結膜に軽度の貧血と下腿浮腫を認めたが，腹部に腫瘤は触知しなかった。

一般臨床検査成績：Hb 10.1g/dl と軽度貧血を認め，LDH が706IU/l と高値であつた。腫瘍マーカーでは，CA19-9値840.0IU/dl，CA125値2,848.0ng/ml，SCC 値2.4IU/ml と上昇していた（表1）。

注腸造影所見：直腸 Rb から Rs にかけて，前壁に粘膜下腫瘍様の隆起性病変を認め，その口側では潰瘍を形成していた（図1）。

直腸内視鏡検査所見：Rb 領域は粘膜下腫瘍様に隆起していた。肛門縁より10～15cm の部位はボールマ

図1 注腸造影所見：直腸前壁に粘膜下腫瘍様の隆起性病変を認める。

ン2型様の潰瘍を形成し、非常に壊死傾向が強く易出血性であった。

骨盤 MRI 所見（矢状断）：T1強調像にて直腸腔中隔に子宮壁より高信号を呈する腫瘍が認められ、子宮と直腸は圧排されていた（図2）。

腹部 CT 所見：肝両葉に多発性転移巣が認められた（図3）。

以上の所見より子宮浸潤・肝転移を伴う直腸腫瘍の術前診断にて外科転科。平成6年7月11日、手術を施行した。

手術所見：下腹部正中切開で開腹。肝両葉に多発性転移を認め、術中迅速腹水細胞診で腺癌細胞が認められた。子宮直腸間には塊状の腫瘍が認められ、両側腸骨動脈周囲リンパ節と閉鎖リンパ節は母指頭大から鳩卵大に累々と腫大し、外腸骨動脈は著明に圧排されていた。手術は子宮・両側付属器と共に直腸を切除し、人工肛門を造設した。

術後経過：急速な肝転移、癌性腹膜炎の増悪をきたし、平成6年9月8日死亡した。

切除標本肉眼所見：腫瘍は6×4cm大で主として直腸と子宮および膣との間に存在し、直腸粘膜を押し上げて潰瘍を形成していた（図4）。

図2 骨盤 MRI 所見：直腸腔中隔に腫瘍が存在し、子宮と直腸は圧排されている。

病理組織学的所見：組織学的には腫瘍細胞は直腸外膜側から筋層を破壊して粘膜面まで浸潤し、粘膜面に近い部位では扁平上皮癌が認められた。腫瘍中心部では主として漿液性腺癌の増生が見られ、部分的に明細胞癌の像も混在しており、多彩な組織像を呈していた。子宮直腸間には子宮内膜症の所見が認められ、これに接して腺癌細胞の増生が認められた。以上の如く多彩な像を示した病巣は、子宮内膜症を母地として発生する腫瘍と考えられた（図5）。

考 察

子宮内膜症は閉経前女性の15%、閉経後女性の2～5%にみられ、その内0.7～1.0%が悪性化すると考えられている¹⁾。現在まで世界で200例余りの悪性化例の報告があるが、本邦ではわれわれの検索し得た限りでは、自験例は山田ら²⁾、安井ら³⁾の報告に次いで3例目の報告である。

Heaps ら¹⁾の報告によると、患者の平均年齢は46歳でその半数は未産婦であるといい、自験例も49歳の未産婦であった。主訴は腹痛・腫瘤触知・性器出血・下血などが多い。腸管子宮内膜症において月経に一致して症状が増悪するものは Teunen らによれば45%⁴⁾、折居らによれば61%⁵⁾である。約半数の症例では月経と症状の増悪に関連性があり、診断に際し重要な点と

図3 腹部 CT 所見：肝両葉に多発性転移を認める。

図4 切除標本所見：腫瘍は直腸と子宮・腔との間に存在し直腸粘膜を押し上げて潰瘍を形成していた。

考えられるが、自験例の様に月経と症状の増悪に関連がない症例も比較的多く、このような場合でも本疾患を否定する材料とはならない。

自験例は病理組織学的に、①「同一組織内に良悪性の子宮内膜組織が共存すること」、②「良悪性の組織像が子宮体部の組織像と近似していること」、③「癌は良性子宮内膜組織内に生じ他の原発病変が存在しないこと」という Sampson の診断基準⁶⁾および「組織学的に良性子宮内膜症から子宮内膜癌への直接的な移行が見

られること」という Scott の追加基準⁷⁾を満たしており、子宮内膜症の悪性化例と術後診断された。

組織型が非常に多彩であることも本疾患の特徴であり、癌が88.4%、肉腫が11.6%と報告されている¹⁾。癌の中では類内膜型腺癌が46.4%と最多であるが本例の如く明細胞癌や扁平上皮癌も報告されている^{1)9)~11)}。

自験例は直腸腔中隔原発であったが、Heaps ら¹¹⁾によると卵巣原発が78.7%と約8割を占め、卵巣外原発では骨盤腹膜 (5.7%)、直腸腔中隔 (4.3%)、結腸・直腸 (4.3%) などが好発部位であると報告されている。

一般に本疾患の術前診断は非常に困難であり、山田ら²⁾、安井ら³⁾の報告においても共に生検では悪性像は得られていない。自験例では初診時既に直腸潰瘍を伴っており、同部からの生検で扁平上皮癌と診断されたが、術前に子宮内膜症の癌化例であるとは診断し得なかった。

山本ら⁸⁾は良性腸管子宮内膜症の画像診断上の特徴として、注腸造影においては偏側性の腸管壁の不整・狭小化を認めること、壁の伸展性が大腸癌に比べ良好であること、大腸内視鏡検査では粘膜下からの隆起・狭窄といった粘膜下腫瘍様の要素が強いことを挙げている。癌化例においても粘膜面まで癌が浸潤していない場合はこのような特徴を持つものと考えられる。また CT・MRI、特に MRI は病変と骨盤内臓器との関連の検索に適しているとされ⁸⁾、自験例においても腫瘍の局在を知る上で非常に有用であった。通常の大腸癌と異なる画像所見や組織学的所見が得られた場合には、本疾患も鑑別疾患のひとつに加えて術前診断を進めていくべきであろう。

治療は外科的切除が第一であるが、原発巣および進行度によっては放射線療法、ホルモン療法も有効であるとする報告もある¹¹⁾¹²⁾。また化学療法も著効は期待

図5 病理組織学的所見：扁平上皮癌（左上）漿液性腺癌（左下）明細胞腺癌（右上）が混在し、子宮直腸間の子宮内膜症に接して腺癌細胞の増生を認める（右下）（H.E., 左・右上×100, 右下×50）。

できず¹⁾本例の如く発見時既に多発肝転移、癌性腹膜炎を呈するような非常に進行した症例では、現状では有効な術後補助療法は望みがたいと思われる。

予後は卵巣原発で5年生存率が65%、卵巣外原発で10%と報告されている¹⁾。これは卵巣外原発の症例は卵巣原発の症例に比べ本例の如く癌性腹膜炎をきたしやすいためと思われる。ただし、自験例の如く急激な肝転移の増悪をきたしたという報告はわれわれの検索し得た限りでは他に見あたらなかった。

結 語

本疾患は非常に稀な疾患である上に術前診断が困難である。また良性腸管子宮内膜症による腸管狭窄のため腸閉塞をきたし、大腸癌との鑑別が困難であったという報告もあり¹³⁾、比較的若年女性の大腸癌疑診例では腸管子宮内膜症およびその悪性化例も鑑別診断に加えるべきであると考えられる。

文 献

- 1) Heaps JM, Nieberg RK, Berek JS: Malignant neoplasms arising in endometriosis. *Obstet Gynecol* 75: 1023—1028, 1990
- 2) 山田紀彦, 田村勝洋, 小切匡央他: 直腸S状結腸エンドメトリオーシス癌化の1治験例—世界報告5例の検討—. *日外会誌* 82: 284—291, 1981
- 3) 安井元司, 安藤修久, 野崎英樹他: 直腸子宮内膜症癌化の1例. *日外会誌* 93: 651—653, 1992
- 4) Teunen A, Ooms ECM, Tytgat GNJ: Endometriosis of the small and large bowel—Study of 18 patients and survey of the literature. *Neth J Med* 25: 142—151, 1982
- 5) 折居 裕, 真口宏介, 中沢郁生他: 内視鏡的直視下生検により確診し得た閉塞性大腸炎を伴う直腸子宮内膜症の1例. *Gastroenterol Endosc* 31: 165—172, 1989

- 6) Sampson JA: Endometrial carcinoma of the ovary, arising in endometrial tissue in that organ. Arch Surg 10: 1—72, 1925
- 7) Scott RB: Malignant change in endometriosis. Obstet Gynecol 2: 283—289, 1953
- 8) 山本博人, 渡辺英之, 小俣 香他: 腸管子宮内膜症の画像診断. 日医放線会誌 53 (臨増): 350, 1993
- 9) Mahpareh MGH, Robert ES: Malignant tumors arising in endometriosis. Clin Obstet Gynecol 23: 951—963, 1980
- 10) Brooks JJ, Wheeler JE: Malignancy arising in extragonadal endometriosis. Cancer 40: 3065—3073, 1977
- 11) Ibrahim FH, Sidney SG, Stephane L: Clear cell carcinoma arising in extraovarian endometriosis—Report of three cases and review of the literature. Gynecol Oncol 39: 314—320, 1990
- 12) Granai CO, Walters MD, Safaii H, et al: Malignant transformation of vaginal endometriosis. Obstet Gynecol 64: 592—595, 1984
- 13) 塩谷雅英, 野田洋一, 成木勝彦: 消化器症状を主訴とし大腸癌が疑われた広範な腸管子宮内膜症の3例. 産婦の進歩 43: 153—160, 1991

A CASE OF MALIGNANT MIXED EPITHELIAL TUMOR ARISING FROM ENDOMETRIOSIS OF THE RECTOVAGINAL SEPTUM

Masaru SASAKI, Nobukazu MIYOSHI, Toshiaki HIRATA, Hiroshi MARUYAMA,
Hayao NAKAI, Naomi SASAKI* and Kiyomi TANIYAMA*

Department of Surgery, Kure Mutual Aid Hospital

*Department of Clinicopathology, Kure Mutual Aid Hospital

A 49-year-old woman was admitted to the hospital because of anal bleeding. Colonoscopy revealed a tumor with deep ulceration in the rectum. Biopsy specimen taken from the ulcer was diagnosed as squamous cell carcinoma. Abdominal and pelvic CT and MRI revealed a mass occupying the rectovaginal septum with multiple liver metastases.

During the operation including rectal resection and hysterectomy with bilateral salpingoophorectomy, panperitonitis carcinomatosa was recognized. Histologically, the tumor was composed of an admixture of squamous cell carcinoma, serous adenocarcinoma and clear cell carcinoma. These cancer cells were in continuity with endometriotic tissue infiltrating in the rectovaginal septum. A diagnosis of malignant transformation of endometriosis was made. She died of panperitonitis carcinomatosa and multiple liver metastasis 2 months after the operation. Malignant transformation of endometriosis is very rare, and this case was found to be the third case in Japan, as far as we could review.