

痔瘻より発生したと思われる粘液癌の1例

熊本大学第2外科

跡部 安則 金光 徹二 荒井 光広 谷川 富夫
高野 定 石井 純 稲森 洋平 赤木 正信

A CASE OF MUCINOUS CARCINOMA DEVELOPING IN CHRONIC ANAL FISTULA

Yasunori ATOBE, Tetsuji KANEMITSU, Mitsuhiro ARAI,
Tomio TANIGAWA, Sadamu TAKANO, Jun ISHII,
Yohei INAMORI and Masanobu AKAGI

Second department of surgery, Kumamoto university school of medicine

索引用語：痔瘻，肛門癌，痔瘻癌

はじめに

痔瘻は日常の診療上しばしば遭遇する疾患であるが，まれに癌腫の合併または癌腫の発生をみることがある。

今回，われわれは痔瘻より発生したと思われる肛門腺由来の肛門癌（粘液癌）の1切除例を経験したので文献的な考察を加えて報告する。

I. 症 例

患者：58歳，男性。

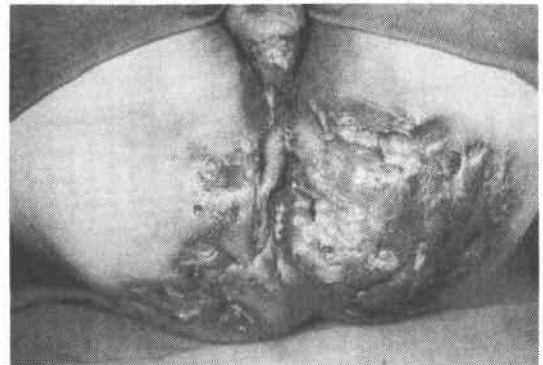
現病歴：6年前より肛門部にときおり疼痛，腫脹が出現していたが，出血はなく放置していた。3カ月前から，肛門部の腫脹が自潰，排膿し，以後，それを繰返している。1カ月前より，疼痛，排膿が次第に増強してきたため，近医を受診し肛門癌を疑われ当科を紹介された。なお，4カ月間で約6kgの体重減少がみられた。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：21歳の時から外痔核が認められているがとくに治療を受けていない。32歳時，虫垂炎にて虫垂切除術施行。

現症：体格大（身長176cm，体重64kg），栄養やや不良，胸部異常なし。腹部は平坦で圧痛および腫瘤はなく，肝，脾，腎を触知せず，右下腹部に虫垂炎手術創瘢痕を認める。両側単徑部に，小指頭大の軟かいリンパ節を数個触知。下肢には異常を認めない。

図1 局所所見。肛門左側を主体に皮膚は淡暗赤色を呈し，そこに，大小多数の瘻孔が開口している。



入院時検査成績：WBC 9,500/mm³，RBC 393×10⁴/mm³，Hb 11.5g/dl，Ht 33.7%，T.P. 7.1g/dl，Alb. 3.3g/dl，GOT26k.u.，GPT 13k.u.，Al-p 77mU/ml，T. Bil. 0.6mg/dl，ZnTT 0.3u，Na 139mEq/L，K 4.4 mEq/L，Cl 105mEq/L，BUN 10.5mg/dl，Cr. 0.9mg/dl，B.S. 85mg/dl，ICG. \bar{R}_{15} = 4%，PSP total 87.4%。

便潜血（グアヤック法）：陰性。

局所所見：肛門左側を主体に，凹凸不整の硬化した淡暗赤色の皮膚が，約15×17cmの範囲に広がり，そこに大小多数の瘻孔が開口し，悪臭をもつ膿汁が流出している（図1）。直腸内指診では，肛門括約筋の緊張は低下しているが，とくに腫瘤などは触知しない。Romanoscopyでは，直腸粘膜は浮腫状で，発赤を認めるのみで，潰瘍，出血，腫瘍の浸潤を思わせる所見は

図2 切除標本。右図は左の写真の切除標本の肉眼的所見のシェーマである。直腸粘膜面で5時の方向に一次口があり、消息子を挿入すると肛門左側の皮膚に開口する二次口の1つに連らなっていた。

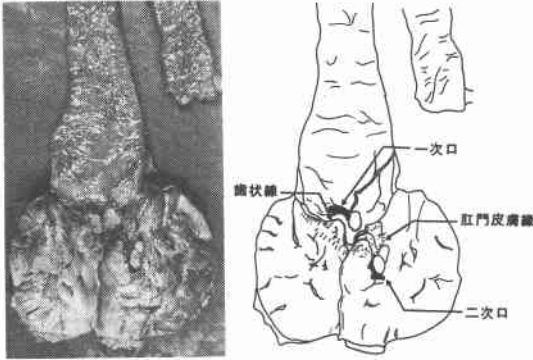
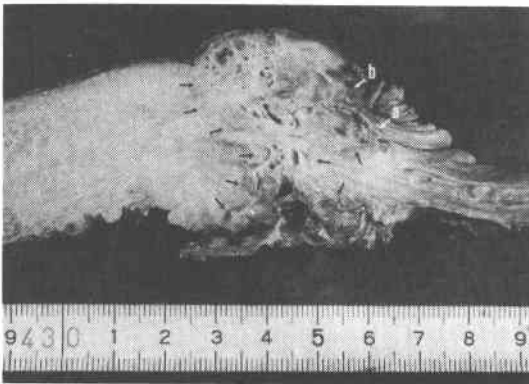


図3 切除標本の剖面。歯状線 (a) よりも肛門側の皮下において約4×5cmの範囲 (黒の矢印で囲んだ部分) に腫瘍が浸潤増殖している (図中のbは肛門皮膚縁を示している)。



ない。前述の自潰部より得られた生検組織が Group 5 と診断されたため、直ちに(昭和52年2月15日)、腹会陰式直腸切断術が施行された。

手術所見：開腹すると腹水は認められず、H₀、P₀、N₀、(n₀) (大腸癌取扱い規約¹⁾による)であった。なお、両側単径部にリンパ節の腫脹を認めたので、併せて根治的単径リンパ節郭清を行い、R₂¹⁾の手術が施行された。

切除標本の肉眼的所見：歯状線から口側0.5cmの直腸粘膜面で5時の方向に2箇所の瘻孔が認められ、消息子を挿入すると、肛門左側の皮膚に開口する瘻孔の1つに連らなっていた(図2)。直腸粘膜面には、ほかに病変を認めない。

病理学的所見：肉眼的に腫瘍は、主として歯状線よ

図4 病理組織像(H.E.染色, ×40)。皮膚側の瘻孔開口部は重層扁平上皮で覆われて瘻管の内面は腫瘍細胞でおきかわっている。図中の黒わくで囲んだ部分の拡大像を図5に示す。

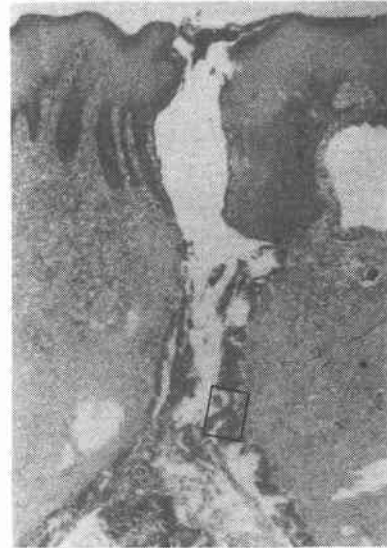


図5 病理組織像(H.E.染色, ×200)。図4の黒わくで囲んだ部分の強拡大像で、腫瘍細胞は重層化、管腔形成傾向、粘液産生のみられる異型性の強い細胞である。



りも下方の肛門および肛門周囲皮膚側に認められ、皮下において、約4×5cmの範囲に浸潤、増殖を認め、歯状線より口側の直腸粘膜においては、粘膜下層および筋層に一部浸潤を認めるのみである(図3)。組織学

的所見としては、腫瘍細胞は、異型が強く、粘液産生が旺盛で、管腔形成能を有し、産生された粘液の中に脱落し、浮遊している。腫瘍辺縁部では結合組織の増生が著明で中に小管腔を形成して腫瘍細胞の浸潤がみられる。以上の所見から、mucinous carcinomaと考えられる。なお、ly(-), v(-)¹⁾、粘液はPAS, Alcian blue 染色でともに陽性であった。皮膚側の瘻孔は、開口部が重層扁平上皮で覆われていて、瘻管の内面は腫瘍細胞でおきかかわっている(図4)。瘻管の内面の腫瘍細胞は、重層化、管腔形成傾向、粘液産生のみられる異型性の強い細胞である(図5)。

手術時郭清されたリンパ節には組織学的に癌の転移は認められなかった。

術後経過：術後の経過は良好で、昭和52年5月25日退院した。その後、癌の再発の徴候はなく、術後8年6カ月の現在健在である。

II. 考 察

肛門腺はanal cryptに開口する小腺組織で、Herrmann and Defosses (1880)によって発見され、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、肛門腺管、肛門腺へと進み、そこに炎症をおこして痔瘻が発生するといわれている。それが長い間炎症をくり返して治癒しない場合、発癌することがある^{2)~7)}。

痔瘻と癌腫の合併については次の3通りの場合が考えられる。すなわち、1) 痔瘻から癌腫が発生したか(痔瘻癌)、2) 癌腫の存在により痔瘻が形成されたか、3) 痔瘻と癌腫が偶発的に併存しているかのいずれかである。前述したように、痔瘻が長期間治癒しないで排膿をくり返していると、その一部から癌が発生してることがあることが報告されているが^{2)~7)}、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い⁸⁾。そこでRosser²⁾、Skir³⁾、McIntyre⁴⁾はそれぞれに痔瘻の臨床経過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。それをまとめてみると痔瘻が長期間(少なくとも10年以上)治癒せず排膿をくり返しており、痔瘻の部分に疼痛や硬結が生じ、mucin様分泌が認められ、しかも原発性の癌が直腸肛門の他の部位になく、瘻管開口部が肛門管またはanal cryptにあることなどの条件を具えているときに臨床的に痔瘻から発生した癌と考えてよいということになる。本症例においては、痔瘻の存在期間は10年に満たず、Skirの条件³⁾を満たしえないが、6年もの間痔瘻が存在し癌腫が前に存在した可能性は臨床経過からみて否定で

きる。また原発の癌腫が他の部位には存在しないこと、瘻管の開口部が肛門腺窩に連なることなど条件がそろっていて、しかも腫瘍組織の形態学的特徴からも強く肛門腺由来を思わせる組織像である。以上より、本症例は痔瘻を母地として発生した肛門腺由来の肛門癌(mucinous carcinoma)と考えられる。

痔瘻に癌腫の発生をみることはまれである。欧米では、Rosser²⁾が1934年に自験例7例を初めて報告して以来、1981年までに報告された症例は150例に満たない⁶⁾。McAnallyら⁹⁾は痔瘻に癌の発生をみた頻度は0.1%であったと報告している。本邦でも、深沢らの病理組織学的な検索から、痔瘻からの癌腫発生が考えられた自験例1例と、文献的に記載の明らかな痔瘻を合併する肛門癌29例のうち臨床的に痔瘻より癌腫が発生したと考えられる症例が3例あったとの報告¹⁰⁾のほか、隅越ら⁸⁾の15例、佐藤ら¹¹⁾、田矢ら¹²⁾のそれぞれ1例など痔瘻癌と診断された症例の報告は少ない。第15回大腸癌研究会における全国集計(西)¹³⁾によれば、昭和24年から昭和55年までの症例では癌発生までの期間が5年以上の痔瘻癌と考えられた症例は28例であったという。

痔瘻癌の症状は直腸癌とは趣を異にしている。隅越ら⁸⁾の15症例では、排膿またはコロイド様分泌11例、疼痛8例、しこり6例とこれら症状が多くみられ、また直腸癌と異なりtenesmusの訴えはなく、むしろ肛門狭窄による排便障害があると報告している。Heidenreichら⁷⁾は痔瘻癌では通常、下痢や便秘などはなく、排便時痛や粘稠な分泌物排泄などが特徴的な症状であるとしている。Klineら¹⁴⁾は直腸癌では出血87%、便通異常53%、疼痛28%であったのに対して、痔瘻癌25例では腫瘤形成が63%と最も多く、次いで疼痛30%、瘻孔からの分泌物排泄の増加23%、出血13%、便通異常3%の順であり、無症状のものも15%にみられたとしている。また、肛門癌という面からみると、小山ら¹⁵⁾は、肛門癌の主要症状として出血、排便時痛、膿性または粘液性の分泌物、肛門部の腫瘤をあげているが、なかでも膿性または粘液性の分泌物は瘻孔を伴う癌に特徴的であるとしている。

痔瘻癌では直腸癌と異なり管外性に発育するため、腸管内腔に腫瘤を形成せず、しかもその発育が遅いため、痔瘻による愁訴が強い場合徐々に進行する癌腫の症状が隠されてしまい、早期診断が困難である。直腸内指診を行っても、肛門管、直腸内にはほとんど変化が見られず、瘻孔の存在部位に一致して管壁あるいは

壁外性に硬結を触れ、圧痛があるのみである⁷⁾。同様に直腸鏡検査にても粘膜面には明らかな腫瘤あるいは潰瘍性の病変は認められない⁷⁾、Feelyら¹⁶⁾は痔瘻瘻の診断においては、会陰部膿瘍壁あるいは瘻孔からの生検が重要であることを強調している。長期間存続している痔瘻、特に多数の2次孔、会陰部組織の腫脹、時に切開排膿を要するような膿瘍などを伴った慢性痔瘻は癌の合併を考慮するとともに、結核、クローン病、梅毒あるいはvenereal lymphogranulomaなどによるものと鑑別を必要とするため⁷⁾¹⁶⁾、少なくとも生検の後、根本的な手段を構ずるのが望ましいと考えられる。生検の際には硬結部の深層におよぶ組織片の採取⁷⁾、痔瘻内口近くからの組織片の採取⁸⁾が必要である。田矢ら¹²⁾は自験例で術前に血中のCEAの上昇があり、術後は正常化していたことから、腫瘍マーカーは補助診断として有効であるとしている。

痔瘻瘻の治療の原則は根治手術であり、その存在部位および進展様式の特異性から、肛門周辺の皮膚、坐骨直腸窩脂肪織、肛門挙筋などを含めて周囲組織を広範囲に合併切除する腹会陰式直腸切断術が行われる⁷⁾⁹⁾。痔瘻瘻手術の際のリンパ節郭清について隅越ら⁸⁾は次のように述べている。すなわち、1) 痔瘻瘻で、はリンパ節の上方向転移はみられないので、下腸間膜動脈根部で切断する必要はなく、左結腸動脈分岐部より下方で上直腸動脈を切断して差支えない、2) 中直腸動脈根部より内腸骨動脈沿線へかけての側方郭清(側方転移率20%)は必ず行うべきである。3) 単径リンパ節転移のある場合(下方転移20%)は郭清を行うべきであるが、痔瘻瘻の場合は粘液癌が多く、この場合は単径部に転移を来しても、リンパの還流を阻害するような完全な郭清を避けて、転移リンパ節を中心に切除する程度でよいなどである。佐藤ら¹¹⁾は自験例で上直腸動脈領域にリンパ節転移を認めており、痔瘻瘻では郭清については他の肛門癌の場合と区別する必要はないとしているが、Heidenreichら⁷⁾も述べているように症例によってはさらに根治的なリンパ節の郭清が必要であろう。

痔瘻瘻手術後の遠隔成績の報告は少い、隅越ら⁸⁾は治癒切除例の5生率は60%(3/5)であったと良好な成績を報告している。他の肛門癌と同様に痔瘻瘻でも粘液癌が多く³⁾⁵⁾⁸⁾¹⁴⁾、これは比較的発育も遅く、悪性度も低いことから必ずしも予後は不良ではないと考えられる¹⁵⁾¹⁷⁾。われわれの症例も術後8年6カ月の現在健在

である。

III. まとめ

臨床経過および症状、病理組織学的所見などから、痔瘻より発生したと思われる肛門腺由来の肛門癌(粘液癌)の1切除例を報告し、若干の文献的考察を加えた。

文 献

- 1) 大腸癌研究会編：臨床・病理。大腸癌取扱い規約。改訂第4版。東京、金原出版、1985、p7-13
- 2) Rosser C: The relation of fistula-in-ano to cancer of the anal canal. *Trans Am Proc Soc* 35: 65-71, 1934
- 3) Skir I: Mucinosa 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) Rundle FF, Hales IB: Mucoïd carcinoma supervening on fistula-in-ano, its surgical pathology and treatment. *Ann Surg* 137: 215-219, 1953
- 6) Getz SB, Ough YD, Patterson RB et al: Mucinous adenocarcinoma developing in chronic anal fistula: Report of two cases and review of the literature. *Dis Colon Rectum* 24: 562-566, 1981
- 7) Heidenreich A, Collarini HA, Paladino AM et al: Cancer in anal fistulas: Report of two cases. *Dis Colon Rectum* 9: 371-376, 1966
- 8) 隅越幸男, 岡田光生, 岩垂純一ほか: 痔瘻瘻。日本大腸肛門病学会誌 34: 467-472, 1981
- 9) McAnally AK, Dockerty MB: Carcinoma developing in chronic draining cutaneous sinuses and fistulas. *Surg Gyencol Obstet* 88: 87-96, 1949
- 10) 深沢 宏, 粕川剛義, 鎌田重康ほか: 痔瘻を伴う肛門部癌について(症例報告と本邦症例の集計)。日本大腸肛門病学会誌 31: 586-592, 1978
- 11) 佐藤 源, 白杵尚志, 吉田英生ほか: 痔瘻に併発した肛門癌の1例。外科診療 26: 663-665, 1984
- 12) 田矢功司, 島村栄生, 中井昌弘ほか: 37年間の多発性難治性痔瘻部に発生した粘液癌の1切除例。外科診療 27: 386-390, 1985
- 13) 西 満正: 大腸癌の発生に関係したと思われる非腫瘍性疾患についてのアンケート集計報告。日本大腸肛門病学会誌 35: 192, 1982
- 14) Kline RJ, Spencer RJ, Harrison EG Jr: Carcinoma associated with fistula-in-ano. *Arch Surg* 89: 989-994, 1964
- 15) 小山靖夫, 森谷亘晴, 北條慶一: 肛門癌の臨床。日本大腸肛門病学会誌 34: 479-484, 1981
- 16) Feely TM, Rosenberg IL: Malignant change in fistula-in-ano. *Ir Med J* 77: 326, 1984
- 17) 隅越幸男: 肛門癌に関するアンケート調査報告。日本大腸肛門病学会誌 35: 92-97, 1982