

## 痔瘻に随伴した肛門管癌 7 例の検討

慶應義塾大学医学部外科, 同 中検病理\*

加瀬 卓 小平 進 寺本 龍生 久 晃生  
古川 和男 山口 博 捨田利外茂夫 長谷川博俊  
郭 宗宏 西堀 英樹 北島 政樹 向井万起男\*

1970年1月から1991年9月までに当教室において経験した、痔瘻に随伴した肛門管癌 7 例について検討した。7 例のうちわけは男性 6 例, 女性 1 例で, 年齢は 43~77 歳 (平均 59.1 歳) であった。痔瘻または膿瘍発症から癌確定までの期間は 4 年~47 年 (平均 22.9 年) であった。主訴として粘液分泌, 肛門部痛, 腫瘤・硬結触知, 出血, 肛門狭窄, などが認められた。7 例全例に腹会陰式直腸切断術が施行され治療切除 4 例, 非治療切除 3 例であった。組織型は粘液癌 3 例, 高・中分化腺癌 3 例, 扁平上皮癌 1 例であった。7 例中 4 例は, 初回生検で確定診断可能であったが, 残りの 3 例は癌確定までに頻回の診断手技を要した。長期にわたり痔瘻を有し, 粘液分泌, 腫瘤・硬結触知などの症状を呈する症例については癌の合併を考慮し, 瘻管切除を含む頻回の生検を施行して確定診断を下すべきであると考えられた。

**Key words:** carcinoma associated with anal fistula, anal carcinoma, anal fistula

### はじめに

痔瘻癌は Rosser<sup>1)</sup>が 1930 年に自験例の 7 例を報告して以来, 長期にわたる痔瘻に随伴して肛門部に癌が発生することは広く知られているものの, その報告は比較的まれである。いわゆる痔瘻癌とは, 長期にわたる痔瘻の既往があり癌の存在部位と痔瘻の存在部位が一致していること, 瘻管開口部が肛門管または crypt にあること, mucin 様分泌物をきたすこと, などの条件を有したものと考えられている<sup>2)</sup>。われわれ臨床医にとって実際に問題となるのは, 長期にわたる難治性痔瘻や肛門部に炎症を伴った症例に遭遇した場合, いかなる症例に癌合併を疑い, 診断, 治療すべきかという点であろう。今回われわれは, 当教室において経験した痔瘻に随伴した肛門管癌 7 例について若干の文献的考察を加え報告する。

### 対 象

1970 年より 1991 年 9 月までの当教室における大腸癌切除症例は 1,454 例で, そのうち肛門管癌は 38 例 (2.6%) であった。肛門管癌は大腸癌取扱い規約<sup>3)</sup>に定められた肛門管 (P) に癌腫の主要占居部位が存在した症例とした。これらのうち痔瘻に随伴して発生した肛

門管癌は 7 例 (18.4%) であった。

### 結 果

#### 1) 年齢・性別

対象とした 7 例の年齢分布は 43 歳から 77 歳までで平均 59.1 歳, 男女のうちわけは男性 6 例, 女性 1 例であった。肛門管癌全体の平均年齢は 62.9 歳, 男女比は男性 22 例, 女性 16 例であった (Table 1)。

#### 2) 症状・病悩期間

7 例の主な症状として粘液分泌, 出血, 狭窄, 疼痛, 腫瘤・硬結触知, 便失禁などが認められた。出血・疼痛は 7 例中 6 例 (85.7%) に, 粘液分泌は 5 例 (71.4%) に, 腫瘤・硬結触知は 4 例 (57.1%) と高率に認め, 狭窄は 2 例 (28.6%) に, 便失禁は 1 例 (14.3%) に認めた。病悩期間の分布は 4 年から 47 年で, 平均 22.9 年であった (Table 1)。

#### 3) 診断

来院時に癌を疑い biopsy を施行した症例は 6 例で, 残り 1 例 (症例 3) は痔瘻の診断で fistulectomy を施行したところ, 病理組織検査で偶然に癌が発見された。Biopsy を施行した 6 例のうち 1 回の biopsy のみで癌の確定診断がついたものは 3 例で, 他の 3 例は初回 biopsy では癌細胞陰性であった。これら 3 例は再度の biopsy, 病変部の比較的広範囲にわたる切除生検, 粘液分泌物の細胞診によって癌と確定診断された。すな

**Table 1** Clinical characteristics of 7 patients with anal carcinoma associated with anal fistula

Age & Sex	Period <sup>a)</sup>	Signs and symptoms	Diagnostic <sup>b)</sup> method	OP <sup>c)</sup>	Hist <sup>d)</sup>	Prognosis <sup>e)</sup>
1. 53M	4 Y	mucinous discharge hard nodule	Punch	C	muc	11Y 2M Alive
2. 55M	30 Y	bleeding, pain hard nodule	Punch	NC	mod	7M Dead
3. 59M	10 Y	mucinous discharge	Fist.	NC	muc	11M Dead
4. 43F	19 Y	bleeding, pain	Punch	C	muc	12Y 10M Alive
5. 77M	20 Y	mucinous discharge bleeding, pain hard nodule	Punch	C	well	3M Dead
6. 62M	30 Y	mucinous discharge pain, hard nodule stenosis	Cytol.	C	sq	2Y 3M Dead
7. 65M	47 Y	mucinous discharge bleeding, pain stenosis	Fist.	NC	mod	10M Alive

a) Personal historical period of anal fistula before the onset of cancer in year (Y).

b) Diagnosis method: Punch, punch biopsy; Fist., fistulectomy; Cytol., cytology. The final diagnosis was made by the first trial in cases 1, 2, 4 and 5. Punch biopsy failed to demonstrate the cancer cells once for Case 2 and twice for case 7. The incisional biopsy also failed to demonstrate malignancy of cases 6 and 7 before the final diagnosis.

c) Abdominoperineal resection was performed in all cases. C indicates curative operation and NC indicates non-curative resection with positive cancer cells in the pathological surgical margin. No hepatic metastases were observed in all cases and the positive lymph nodes metastasis was found only in pararectal lymph nodes of case 5. The adjuvant radiation was added only to case 6. Plastic reconstruction was performed in case 1, 2, 3, 5 and 6.

d) Histological findings indicate muc, mucinous adenocarcinoma; mod, moderately differentiated adenocarcinoma; well, well differentiated adenocarcinoma and sq, squamous cell carcinoma.

e) Patients have died by cancer except cases 5 and 6 who have died because of sepsis with abdominal abscess.

わち、対象とした7例中、1回の biopsy のみで癌の確定診断がついた症例は3例(42.9%)と低率であった (Table 1).

#### 4) 治療

対象症例7例全例に対し腹会陰式直腸切断術が施行された。治癒切除4例、非治癒切除3例であった。広範な肛門部切除創に対しては筋皮弁などの形成外科的手技が5例に施され、1例に放射線療法が併用された (Table 1).

#### 5) 組織型

7例の組織型のうちわけは、粘液癌3例(42.9%)、高・中分化腺癌3例(42.9%)、扁平上皮癌1例(14.3%)であった (Table 1).

#### 6) リンパ節転移

組織学的にリンパ節転移を認めたものは治癒切除症例4例中1例のみで、非治癒症例を含めた7例全例に

おいても術中の肉眼的診断ではリンパ節転移を認めなかった。リンパ節転移を確認した症例(症例5)は1群リンパ節<sup>3)</sup>(壁にリンパ節)にのみ転移を認め、側方、下方(そけいリンパ節)および上方( $n_2$ 以上)への転移は認めなかった (Table 1).

#### 7) 予後

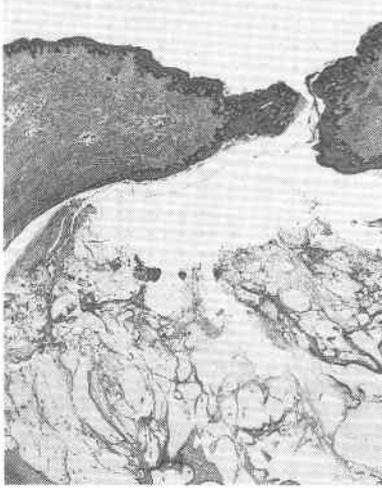
対象症例7例中、他病死した2例を除いた5年生存率は53.3%、治癒切除4例では1例の他病死を除き全例生存している(症例1:11年2か月、症例4:12年10か月、症例7:10か月)。組織型別による予後を検討すると、粘液癌3例中1例は5年以上生存しているが1例は他病死し、1例は11か月で死亡している。腺癌3例のうち2例(症例4、7)が手術後現在も生存中であり、1例は術後7か月で死亡した。扁平上皮癌は術後3か月で他病死している (Table 1).

#### 8) 症例

7症例のうち、粘液癌、扁平上皮癌、腺癌のおおの1例ずつを提示する。

症例①：53歳男性。肛門周囲膿瘍で切開排膿され、それ以後4年にわたり痔瘻を患っていた。瘻孔よりの粘液分泌の増加と硬結触知を主訴に、1979年7月4日

**Fig. 1-A** Histological finding of Case 1. The narrow fistula and proliferation of mucinous adenocarcinoma are noted. (H & E stain, original magnification  $\times 8.5$ )



**Fig. 1-B** Histological finding of Case 6. Squamous cell carcinoma protruded into the fistula. (H & E stain, original magnification  $\times 9$ )

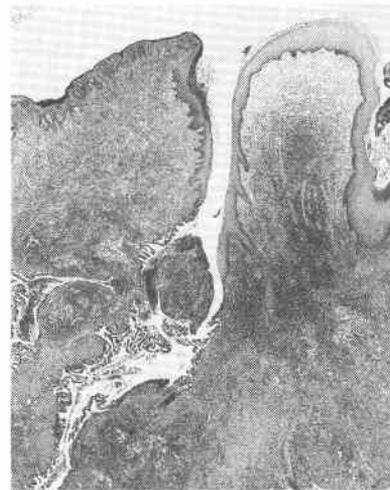


本院を受診した。病変部のパンチ生検で癌細胞を認めため同年8月30日、腹会陰式直腸切断術を施行した。瘻管に沿って癌細胞と著明な粘液を認める粘液癌で、 $a_2$ ,  $ly_0$ ,  $v_0$ ,  $ew(-)$ ,  $ow(-)$ ,  $aw(-)$ ,  $n(-)$ , stage IIであった (**Fig. 1-A**)。術後12年を経た現在、再発の兆候なく生存中である。

症例⑤：77歳男性。20年間にわたり痔瘻の緩解、増悪を繰り返していたが肛門部の腫瘤を自覚し、粘調排便の増加を認めたため、1989年5月13日当院を受診した。病変部のパンチ生検で扁平上皮癌と診断し、同年7月3日、腹会陰式直腸切断術を施行した。瘻管に沿って扁平上皮癌が認められ、 $a_1$ ,  $ly_1$ ,  $v_1$ ,  $ew(-)$ ,  $ow(-)$ ,  $aw(-)$ ,  $n(-)$ , stage IIであった (**Fig. 1-B**)。本例は術後3か月目に腹腔内膿瘍による敗血症で死亡した。

症例⑦：65歳男性。痔瘻発症から47年を経た後、肛門部の疼痛、狭窄、粘液分泌が著明となったため他院を受診した。他院では2回にわたる生検（1回は切除生検）で癌細胞陰性と診断されたが、長期にわたる痔瘻と粘液分泌、肛門部硬結を認めたことより癌合併が強く疑われ1990年12月11日当院を紹介された。当院でのパンチ生検にても癌細胞陰性と診断され、分泌物の細胞診も class I であった。しかし、硬結部を中心とした切除生検 (fistulectomy) を施行したところ、瘻管に沿って中分化型腺癌を認めた (**Fig. 1-C**)。本症例には

**Fig. 1-C** Histological finding of Case 7. The narrow fistula and the proliferation of moderately differentiated adenocarcinoma are noted. (H & E stain, original magnification  $\times 11.5$ )



1991年2月14日、腹会陰式直腸切断術を施行した。切除腸管には癌の遺残を認め、 $a_2$ ,  $ly_1$ ,  $v_0$ ,  $ew(-)$ ,  $ow(-)$ ,  $aw(-)$ ,  $ew(-)$ ,  $n(-)$ , stage IIであった。手術後9か月を経た現在再発の兆候なく生存中である (Table 1)。

### 考 察

隅越ら<sup>4)</sup>は痔瘻癌であるための条件として、Rosser<sup>1)</sup>, Skir<sup>5)</sup>, McIntyre<sup>6)</sup>, Rundleら<sup>7)</sup>が提唱した痔瘻癌の条件を、5つの項目にまとめている。すなわち、1) 痔瘻が長期にわたって (少なくとも10年以上) 炎症を繰り返している、2) 痔瘻の部分に疼痛や硬結を認める、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、などの条件がみたされた時に痔瘻から発生した癌であると規定している。自験例7例中、これらすべての条件を満たすと考えられたものは症例3, 5, 6, 7の4例であった。これら5条件を満たしていない症例も、痔瘻の存在以前に癌が発生したとは考えにくく、また肛門腺由来を強く示唆する組織像であることから、痔瘻から発生した肛門管癌であると考えられた。

痔瘻癌の頻度は McAnally ら<sup>8)</sup>によれば全痔瘻の0.1%の頻度であるといわれている。第14回大腸癌研究会アンケート結果をまとめた隅越ら<sup>9)</sup>の報告では全肛門癌1,216例中、113例(9.3%)が痔瘻に合併し、10年以上痔瘻が持続したものは80例(6.6%)に認められたという。男女比は男性例が多いとされており、隅越ら<sup>4)</sup>の報告した痔瘻癌15例でも男性12例、女性3例と男性に高率に発生している。われわれの7症例も女性は1例のみであり、前述の5条件を満たした4例においてはすべて男性であった。

痔瘻癌の臨床症状は特徴的である。Kline ら<sup>10)</sup>は痔瘻癌の症状として、腫瘤形成、疼痛、粘液分泌増加を多く認めたと報告している。隅越ら<sup>4)</sup>は痔瘻癌15例中、排膿コロイド様分泌を11例、疼痛8例、しこり6例、便柱狭小5例、出血4例を認めたと報告している。これらの症状のうち、出血、疼痛は内外痔核や直腸、結腸癌においても一般的に認められる症状であると考えられるが、これら症状に加えて肛門部の腫瘤・硬結触知、多量の粘液分泌を伴う痔瘻患者に対しては癌を強く疑うべきであろう。われわれの7例においても腫瘤・硬結触知と粘液分泌を高率に認めている。

痔瘻癌の診断には、生検を行い組織学的に診断をつける必要がある<sup>4)</sup>。対象とした7例のうち、1回の生検

のみで癌の確定診断がついたものは3例(42.9%)と低率であり、症例7のように数回におよぶパンチ生検や内孔を中心とした切除生検にても診断に至らず、硬結部の広範囲にわたる切除生検 (fistulectomy) で初めて癌の診断が得られるといった症例も存在し、その診断の困難さがうかがえる。False negative を避けるために内孔近くからの生検を薦める文献<sup>4)</sup>もあるが、われわれは痔瘻に癌発生を疑った場合、分泌物の細胞診や病変部の狭い範囲の生検で negative であった症例に対しては、切除生検、特に瘻管を含んだ比較的広範囲にわたる切除生検を積極的に施行するべきであると考えている。McIntyre<sup>6)</sup>も腰椎麻酔下での広範囲にわたる切除生検を薦めており、局所麻酔下で negative と判定された3例をこの方法により癌と診断しえたと報告している。

肛門癌の治療は下部直腸癌と同様に腹会陰式直腸切断術などの根治手術が必要である。特に痔瘻癌は直腸癌と異なり、壁外性に発育し坐骨直腸窩に癌が存在していることが大部分であるので肛門周囲皮膚と坐骨直腸窩軟部組織を広範囲に切除する必要がある<sup>4)11)</sup>。そのため欠損部の修復には種々の形成外科的手法が用いられ、われわれの7例中4例にも種々の皮膚筋弁を用いた再建術が行われた<sup>12)13)</sup>。痔瘻癌には上方向のリンパ節転移を認めないとする報告<sup>14)15)</sup>が多くみられ、われわれの症例でも上方向のリンパ節転移をきたした症例は認められなかった。隅越ら<sup>3)</sup>は痔瘻癌15例中、側方、下方転移をきたした症例はどちらも15例中3例で、上方転移例は1例もなかったと報告し、こうした特徴をふまえたうえで痔瘻癌に対しては以下のような郭清を薦めている。すなわち、1) 下腸間膜動脈根部で切断する必要はなく左結腸動脈根部分岐部より下方で上直腸動脈を切断してよい、2) 中直腸動脈より内腸骨動脈沿線へかけての廓清は必ず行うべきである、3) そけいリンパ節転移のある症例に対しては郭清を行うが、粘液癌の場合は予後が良好であるため、リンパの還流を阻害するような完全な郭清は避けてもよい、などである。しかし、上方向への転移を認めたとする報告<sup>16)17)</sup>もあり痔瘻癌に対するリンパ節の廓清は症例により慎重に施行されるべきであろう。

肛門管に発生する悪性上皮性腫瘍は、病理組織学的に腺癌、粘液癌、扁平上皮癌、腺扁平上皮癌、類基底細胞癌、未分化癌、その他の癌、に分類される<sup>3)</sup>。第14回大腸癌研究会のアンケート調査<sup>2)</sup>では、痔瘻に随伴した肛門部癌95例中、粘液癌47例、腺癌36例(粘液癌

を除く)扁平上皮癌7例, その他5例であったという。Rundle<sup>7)</sup>, Klineら<sup>10)</sup>も痔瘻癌のうち約半数に粘液癌を認めたと報告している。

痔瘻癌の予後は比較的良好とされており, 隅越ら<sup>4)</sup>は5年生存率は60%と報告している。われわれの7例も他病死した2例を除いた5例の5年生存率は53.3%で, 他病死した1例を除いた治癒切除例3例は10年以上生存2例, 9か月生存1例と全例生存しており, 治癒切除を施行しえれば良好な予後が期待できると考えられる。

#### 文 献

- 1) Rosser C: The ethiology of anal cancer. *Am J Surg* 11: 328-333, 1931
- 2) 加藤 洋, 吉田正一: 肛門管癌の組織像。癌の臨 33: 1344-1346, 1987
- 3) 大腸癌研究会編: 臨床・病理。大腸癌取扱い規約。第4版。金原出版, 東京, 1985
- 4) 隅起幸男, 岡田光生, 岩垂純一ほか: 痔瘻癌。日本大腸肛門病会誌 34: 467-472, 1981
- 5) Skir I; Mucinous carcinoma associated with fistulas of long-standing. *Am J Surg* 75: 258-289, 1948
- 6) McIntyre JM: Carcinoma associated with fistula-in-ano. *Am J Surg* 84: 601-613, 1984
- 7) Rundle FF, Hales IB; Mucoïd carcinoma supervening on fistula-in-ano, its surgical pathology and treatment. *Ann Surg* 137: 215-219, 1953

- 8) McAnally AK, Dockerty MB: Carcinoma developing in chronic draining cutaneous sinuses and fistulas. *Surg Gynecol Obstet* 88: 87-96, 1949
- 9) 隅越幸男: 肛門癌に関するアンケート調査報告。日本大腸肛門病会誌 35: 92-92, 1982
- 10) Kline RJ, Spencer RJ, Harrison EG Jr: Carcinoma associated with fistula-in-ano. *Arch Surg* 89: 989-994, 1964
- 11) 田矢功司, 島村栄員, 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 37: 386-390, 1985
- 12) Maruyama Y, Nakajima H, Kodaira S: Primary reconstruction of perineal defect with a bilobed myocutaneous flap: Case report. *J Plastic Surg* 33: 440-444, 1980
- 13) 原科孝雄, 小平 進, 生田勇治ほか: 薄筋縫工筋複合筋皮弁による肛門癌切除後の再建術。手術 37: 139-141, 1983
- 14) 跡部安則, 金光徹二, 荒井光広ほか: 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
- 15) 田中千凱, 伊藤隆夫, 竹腰知治ほか: 50年来の痔瘻に発生した肛門部粘液癌の1例。臨外 41: 1065-1068, 1986
- 16) 加納宣康, 松原長樹, 雑賀俊夫ほか: 30数年来の痔瘻に続発した肛門部粘液癌の1例。日消外会誌 18: 1020-1023, 1985
- 17) 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

### Seven Cases of Anal Carcinoma Associated with Anal Fistula

Suguru Kase, Susumu Kodaira, Tatsuo Teramoto, Kousei Hisa, Kazuo Furukawa, Hiroshi Yamaguchi, Tomoo Shatari, Hirotoishi Hasegawa, Tson-Hong Kuo, Hideki Nishibori, Masaki Kitajima and Makio Mukai\*

Department of Surgery and Division of Surgical Pathology, Central Clinical Laboratories\*, Keio University School of Medicine

We studied 7 cases of anal carcinoma associated with anal fistula, which were treated in our institute from January 1970 to September 1991. The patients consisted of 6 men and one woman with an average age of 59.1 years ranging from 43 to 77 years. The period from the onset of anal fistula to the diagnosis of carcinoma ranged from 4 to 47 years with a mean of 22.9 years. Their chief complaints were anal mucinous discharge and/or bleeding, anal pain, palpitation of perianal hard nodules and anal stenosis. All patients were treated by abdominoperineal resection consisting of 4 curative and 3 non-curative resections. Histological findings varied, with 3 mucinous and 3 well/moderately differentiated adenocarcinomas and one squamous cell carcinoma. Although 4 of the 7 cases were diagnosed at the first diagnostic trial, the repeated biopsies failed to reveal the cancer cells in the other 3 cases until the final diagnosis. We concluded that repeated diagnostic trials including extended excision of the fistula are required for patients who have a long history of anal fistula with mucinous discharge and hard nodules, to differentiate the onset of anal carcinoma.

**Reprint requests:** Suguru Kase Department of Surgery, Keio University School of Medicine  
25 Shinanomachi, Shinjuku-ku, Tokyo, 160 JAPAN