

Pagetoid spread を伴った肛門管癌の1切除例

愛知県がんセンター消化器外科

小玉 正太 平井 孝 加藤 知行
巻渕 弘治 藤光 康信 紀藤 毅

症例は47歳の男性。肛門出血および腫瘍の肛門からの脱出を主訴として、平成6年8月1日近医を受診。平成6年8月18日、経肛門的腫瘍摘出術を施行された。平成6年9月12日当科入院。摘出標本上、高分化腺癌 (mp) から、肛門粘膜上皮内に pagetoid spread を認めたため、肛門周囲の皮膚生検を系統的に施行し、浸潤範囲を同定した。腹会陰式直腸切断術施行後1年4か月が経過したが、再発徴候なく外来通院中である。

肛門管癌に合併した肛門周囲 Paget 病変は極めてまれで、文献上著者が検索しえた限りでは、自験例を含めて9例の報告のみである。また根治術施行前に肛門周囲の浸潤範囲を同定しえた報告は、検索しえた限り自験例のみであり、文献的考察を加え報告した。

Key words: anal canal cancer, skin biopsy, perianal pagetoid spread

はじめに

肛門周囲 pagetoid spread は、肛門周囲の皮膚または肛門粘膜上皮内に大型淡明ないわゆる Paget 細胞が浸潤していることが特徴である。しかし pagetoid spread を伴った肛門管癌は極めてまれであることや、肛門周囲皮膚浸潤範囲の術前における同定が、肉眼的所見からは困難¹⁾なことから術前には見のがされやすい。今回我々は根治術前に、存在および局在診断をしえた肛門周囲 pagetoid spread を伴った肛門管癌の1切除例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：47歳、男性

主訴：肛門出血および腫瘍の肛門からの脱出

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5年3月頃より、排便時に肛門出血あり。平成6年4月頃より肛門から、腫瘍が脱出するようになったが、痔だと思ひ放置した。平成6年8月1日近医を受診し、8月18日肛門ポリープの診断で、経肛門的腫瘍摘出術を施行された。術後病理学的検索により、肛門ポリープは高分化型腺癌で、中等度のリンパ管侵襲を認めたため、根治術を勧められ、本人希望にて当科受診、平成6年9月12日当科入院となった。

初診時肛門部所見：肛門指診では、肛門管内後壁に約1cm位の平坦な癬痕様腫瘍を触知した。肛門鏡所見では、肛門管後壁に手術による癬痕があり、その内部に結紮糸を認めた。また癬痕より、連続的な進展で歯状線を越えるびらん様病変を認めた。

臨床検査所見：血液・生化学的検査では特に異常所見は認められず、腫瘍マーカーも正常範囲であった。

画像診断：経肛門的腫瘍摘出術施行前の注腸所見では、下部直腸後壁から肛門管にかけて、比較的表面平滑な4cm大の隆起性病変あり。側面像では、明らかな壁の変形は認めなかった。根治術施行前の computed tomography および magnetic resonance imaging では、明らかなリンパ節の腫大は認めなかった。

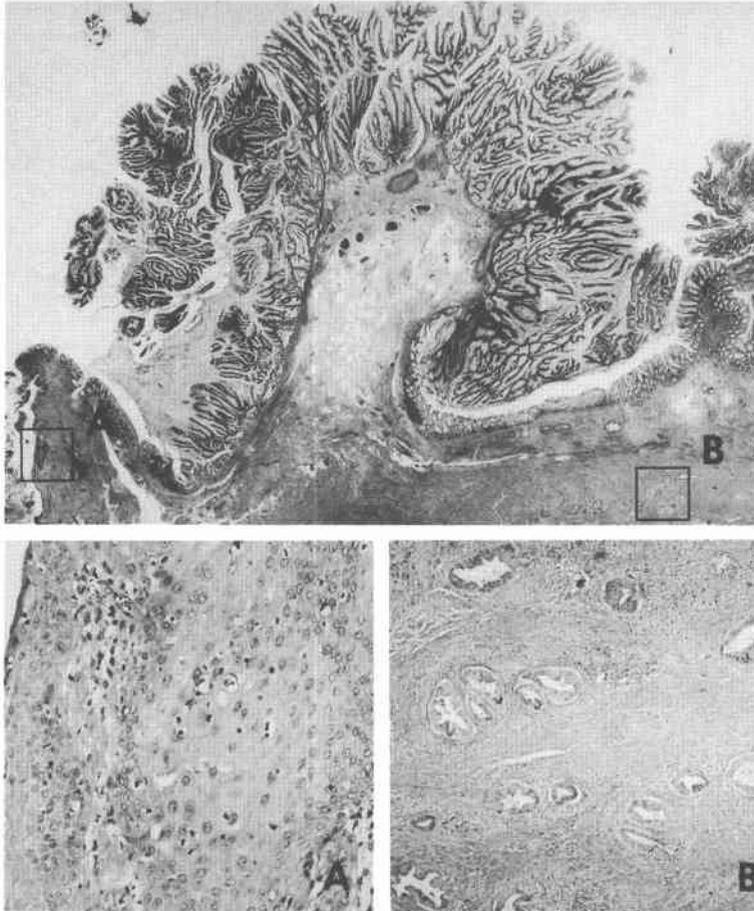
持参した組織標本を検討した結果、中分化型腺癌、深達度は固有筋層、また肛門管粘膜重層扁平上皮内に、大型淡明ないわゆる Paget 細胞が浸潤する、pagetoid spread を示し、同部で断端が陽性であった (Fig. 1)。以上より根治術施行前に、皮膚浸潤範囲を同定するため、皮膚生検を行った。

皮膚生検：肉眼的にはびらん、潰瘍といった病変は認めなかったが、肛門縁より1cmの間隔で皮膚生検を施行したところ、0時を中心に、1cm円心上に pagetoid spread を認めた (Fig. 2a)。さらに詳細な浸潤範囲を同定すべく、2cm、3cm円心上の皮膚生検を再度施行し、皮膚切離線を決定した (Fig. 2b)。以上より肛門周囲 pagetoid spread を伴った肛門管癌と診

<1996年2月14日受理>別刷請求先：小玉 正太
〒464 名古屋市千種区鹿子殿1番1号 愛知県がん
センター消化器外科

Fig. 1 Histology of the anal tumor at local excision (Fig. 1a: HE, $\times 10$, 1b and 1c: HE, $\times 200$). Histologically, the anal tumor was moderately differentiated adenocarcinoma, which invaded muscularis propria (1b) with perianal pagetoid spread (1c).

1a
1c | 1b



断し、根治術を施行した。

手術所見：平成6年10月3日腹会陰式直腸切断術を行い、S4神経のみ温存した側方郭清術(D3)を加えた。皮膚切離線は、術前生検にてすべて癌陰性であった。肛門縁から3cmのところで行った。

臨床的病期は、RbP後型I型H₀P₀N₁251(+)Mp Stage IIIaであった²⁾。

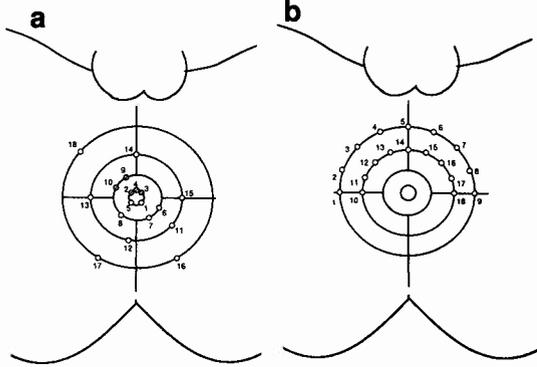
切除標本：歯状線直上7時を中心に3×2cmの浅い陥凹性病変を認め、経肛門的腫瘍摘出術後の瘢痕で、癌遺残を認めた。また同部より連続的な進展を認める、3.0×2.5cmのびらん様病変を、7時の歯状線から肛

門縁皮膚にかけて認めた。また、5mm間隔で組織標本を作成し pagetoid spread の進展をシェーマで示した (Fig. 3)。

組織学的所見：切除標本の黒丸線上の組織標本を作成した (Fig. 3a)。標本では肛門の扁平上皮内、肛門管の粘膜下、筋層に癌細胞を認めた (Fig. 4a, b)。また肛門管粘膜重層扁平上皮内に、大型淡明ないわゆる Paget 細胞が浸潤した、pagetoid spread を認めた (Fig. 4c)。

組織学的病期は、H₀P₀n₁251(+)mp stage IIIa、根治度 A であった²⁾。

Fig. 2 Skin punch biopsy was performed in perianal area. Hatched circle shows pagetoid spread (2a). There was no pagetoid spread proven in additional biopsies (2b).



術後経過：術後7か月の現在,再発の徴候を認めず,外来通院中である。

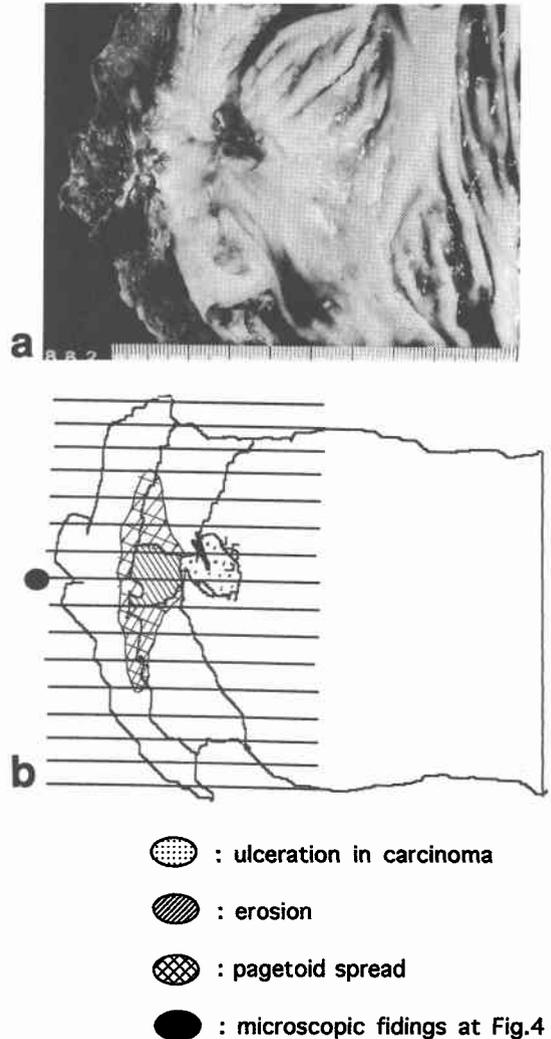
考 察

1893年に Darier ら³⁾によって, はじめて肛門周囲 Paget 病が報告されたが, 乳房外 Paget 病の中でも, 肛門管癌に肛門周囲 Paget 病を伴った症例は, 極めてまれであり, 文献上自験例を含んでも9例にすぎない^{4)~10)} (Table 1)。

大山⁴⁾は, 肛門周囲 Paget 病変を次の3型に分類した。すなわち, 1) Paget 細胞が上皮内に限局するもの, 2) 汗管ないし汗腺癌を伴う肛門周囲 Paget 病, 3) 肛門癌・直腸癌を伴う肛門周囲 Paget 病である。本症例は分類3)に属した。このように明らかに周囲臓器に原発巣が存在し, Paget 病変と連続性が証明されれば, Paget 現象, pagetoid spread として区別されるが, 実際にその連続性を証明することは難しい。また, 藤原ら⁵⁾は特殊型である pagetoid spread を示す腺癌と, いわゆるアポクリン腺由来の Paget 癌とは区別されなければならないと述べており, Paget 現象を示す腺癌の予後は悪く, 表皮内に限局したアポクリン腺癌は予後が良いといわれる。

根治術施行前に pagetoid spread を同定しえた報告は少ない。本症例では, 術前2回にわたり肛門周囲の皮膚生検を行い浸潤範囲を同定した。0時を中心に, 10時から2時の2cm未満の同心円上に pagetoid spread を証明しえたが, 切除標本の5mm切片による mapping では, 6時を中心に10時から4時に浸潤を認めており, 皮膚生検と若干のずれを認めた。しかしながら, 組織標本より肛門縁から2cm以上の同心円上皮

Fig. 3 Resected specimen.



膚に浸潤は認めず, 皮膚生検は根治術施行時の皮膚切離線決定には, 有用であった。本邦報告例でも皮膚浸潤の広がり, 狭い範囲という記載から, 直径10cmにわたるとするものまであり, なかには細長く延びる不規則な進展を, 示すものまでであった。このように, 術前肛門周囲に紅斑, 灰白色, 隆起, 潰瘍, 湿疹様の病変を認めたならば, 積極的に Paget 病変を疑う必要がある。そして再切除を要することがないように, また広い浸潤範囲の場合は, 会陰再建をも術前に予定するために, 皮膚生検にて術前に進展範囲を同定することが肝要であると考えられた。本症例では根治術前の組織標本で, pagetoid spread を確認できたが, 皮膚病変

Fig. 4 Cut section of the resected specimen at APR (4a: HE, $\times 10$, 4b and 4c: HE, $\times 200$). Histologically, the anal cancer was moderately differentiated adenocarcinoma and which invaded to the muscularis propria (4b), with perianal pagetoid spread (4c).

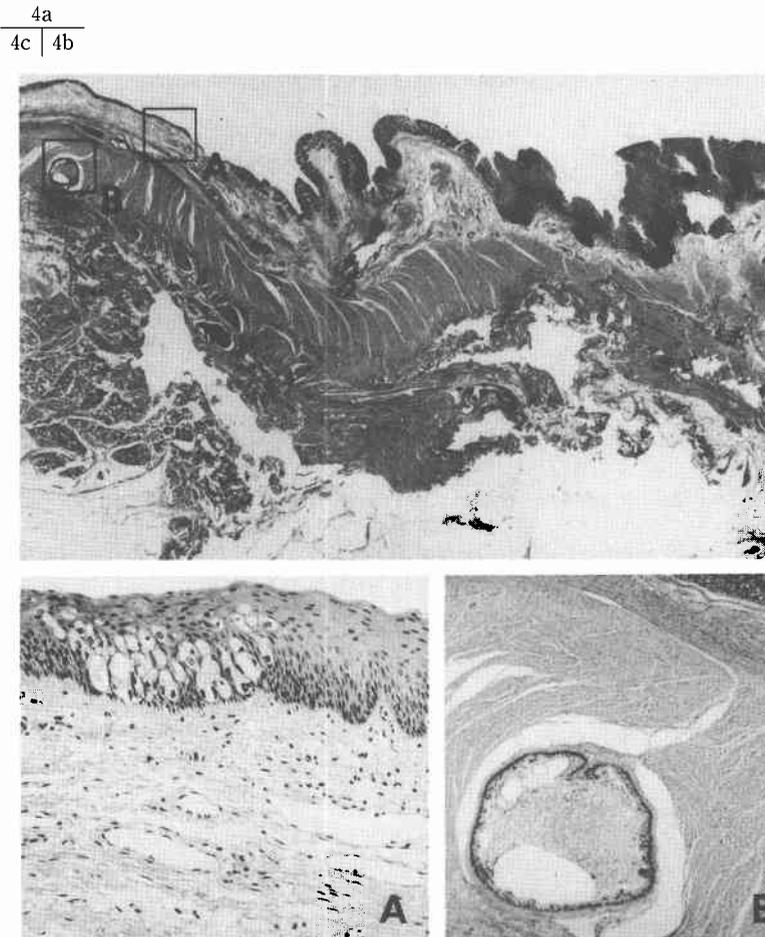


Table 1 Reported cases of anal cancer with pagetoid spread

No	Author	year	age & sex	disease	Histological type	Operation method
1	Ariwa	1976	77 F	anal cancer	mucocellular carcinoma	APR
2	Ariwa	1976	78 F	anal cancer	colloid carcinoma	local excision
3	Hasizume	1985	82 F	anal cancer	unknown	unknown
4	Fujiwara	1987	68 M	anal cancer	mucocellular carcinoma	APR
5	Simizu	1989	65 M	anal cancer	mucocellular carcinoma	APR
6	Kumegawa	1991	59 F	anal cancer	mucocellular carcinoma	APR
7	Hirai	1992	52 M	anal cancer	mucocellular carcinoma	APR
8	Yamada	1993	79 M	anal cancer	mucocellular carcinoma	APR
9	Present Case	1995	47 M	anal cancer	moderately differentiated adenocarcinoma	APR

APR: Abdominoperineal resection

は見逃かぬない微小病変であった。術前に範囲を同定できたのは幸運ともいえる。

本症例の病理学的所見につき御指導いただきました愛知県がんセンター病院病理部 越川 卓先生ならびに中村栄男先生、皮膚科学的所見につき御指導いただきました愛知県がんセンター皮膚科 小野博紀先生に感謝いたします。

文 献

- 1) 平井 孝, 加藤知行, 小林建司ほか: Pagetoid spread を呈した肛門腺由来の肛門管癌の1切除例. 手術 46: 1767-1770, 1992
- 2) 大腸癌研究会編: 大腸癌取扱い規約. 第5版. 金原出版, 東京, 1994
- 3) Darier J, Couilland P: Sur un cas de la region perineoaneale et scrotale. Ann Dermatol Syph 4: 25-31, 1893
- 4) 大山勝郎: 乳房外 Paget 病の臨床病理学ならびに電顕的研究. 第3報. 日皮会誌 91: 1207-

1219, 1981

- 5) 藤原 章, 吉田正一, 加藤 洋ほか: 肛門管癌の病理. 胃と腸 22: 279-290, 1987
- 6) 有輪六朗, 隅越幸男, 岡田光生ほか: 肛門 Paget 病変の病理学的検討. 日本大腸肛門病会誌 32: 478-484, 1979
- 7) 橋爪鈴男, 山本百合子: 肛門 Paget 病. 皮の臨 27: 147-150, 1985
- 8) 清水哲朗, 加藤 博, 山下芳朗ほか: 肛門 Paget 病変を伴う肛門癌の1例. 日臨外医会誌 50: 1606-1611, 1989
- 9) 久米川浩, 白水和雄, 磯本浩晴ほか: 子宮頸癌に対する放射線照射後に肛門周囲 Paget 病が先行した肛門癌の1例と本邦報告例の検討. 日本大腸肛門病会誌 44: 206-211, 1991
- 10) 山田達治, 山口晃弘, 磯谷正敏ほか: 肛門 Paget 病変を伴った肛門部粘液産生癌の1例. 日消外会誌 28: 739-743, 1995

A Case Report of Anal Canal Cancer with Perianal Pagetoid Spread

Shota Kodama, Takashi Hirai, Tomoyuki Kato, Kouji Makibuchi,
Yasunobu Fujimitsu and Takeshi Kito

Department of Gastroenterological Surgery, Aichi Cancer Center Hospital

A 47-year-old male consulted a nearby physician, with anal bleeding and prolapse of an anal tumors as chief complaints, and underwent transanal local excision of the tumor. Histopathological examination of the resected specimen revealed well-differentiated adenocarcinoma invading as far as the muscularis propria and accompanied with perianal pagetoid spread, the extent of which had to be evaluated by skin biopsies. The patient is well and disease-free 7 months after undergoing abdomino-perineal resection with adequate incision of the perianal involved area. Cancer of the anal canal is seldom accompanied by pagetoid spread and only nine such cases, including ours, have been reported. The extent of perianal spread of the disease was not properly evaluated in any of the cases reported so far, and adequate management of the rare disease is described in the present case report with references to the literature.

Reprint requests: Shota Kodama Department of Gastroenterological Surgery, Aichi Cancer Center Hospital
1-1 Kanokoden, Chikusaku, Nagoya, 464 JAPAN