

リンパ節転移を来した直腸子宮内膜症癌化の1例

市立豊中病院外科

池田 公正 島野 高志 北田 昌之 塚原 康生
柴田 高 福島 幸男 秦 信輔 赤木 謙三
藤田 淳也 奥山 正樹

腸管子宮内膜症の癌化例は極めてまれであり、自験例を含めてこれまで世界で16例の報告をみるのみである。今回、われわれは直腸子宮内膜症癌化の1例を経験したので報告する。症例は56歳の女性。25歳時子宮内膜症の手術を受けている。主訴は下血で、大腸内視鏡および注腸造影で上部直腸に中心潰瘍を伴う粘膜下腫瘍が認められた。骨盤CTおよびMRIでは直腸間質内の嚢胞状リンパ節転移が認められた。開腹時腫瘍は直腸前壁に存在し、子宮・回腸と一塊となっており、低位前方切除、子宮・両側付属器・回腸合併切除を施行した。病理組織学的検査で、子宮内膜腺と周囲結合織を認め、これに接して腺癌の乳頭状増殖・浸潤を認めた。リンパ節転移も組織学的に確認された。以上の所見より、直腸子宮内膜症の癌化と診断した。患者は、術後5か月に多発性肝転移を来し、10か月で死亡した。腸管子宮内膜癌におけるリンパ節転移は予後不良を示唆する因子と考えられた。

はじめに

腸管子宮内膜症は消化器外科医がしばしば遭遇する疾患であるが¹⁾、その癌化例は極めてまれである。今回、われわれはリンパ節転移を来した直腸子宮内膜症の癌化例を経験したので、これを報告するとともに、これまでの報告例を集計し文献的考察を加えた。

症 例

患者：56歳、女性

主訴：下血

既往歴：25歳子宮内膜症手術（術式不明）。

家族歴：父；胃癌。

現病歴：1999年8月2日下血を主訴に当院を受診し、直腸指診で上部直腸前壁に粘膜下腫瘍を触知した。大腸内視鏡検査では中心潰瘍を伴う粘膜下腫瘍を認め、以降計3回内視鏡下生検を行ったが、確定診断には至らなかった。注腸X線造影、骨盤CT、MRI検査を行い、9月2日手術目的で入院した。

入院時現症：貧血を認めず、腹部に腫瘍は触知しなかった。直腸指診で粘膜下腫瘍を認めた。

血液検査所見：血液生化学検査に異常はなく、腫瘍マーカーもCEA 2.9ng/ml, CA19-9 31U/l, CA125 26U/lと正常範囲内であった。

大腸内視鏡検査：上部直腸前壁に中心潰瘍を伴う粘膜下腫瘍を認めた(Fig. 1a)。また、下部直腸には可動性良好な多発性の壁外性嚢胞状腫瘍も認められた(Fig. 1b)。

注腸X線造影：上部直腸前壁に表面不整な隆起性病変を認めた(Fig. 1c)。

骨盤MRI：腫瘍はT1 low, T2 heterogenous intensityを示し、直腸間膜にはT1 low, T2 high intensityを示す嚢胞状のリンパ節腫大を認めた(Fig. 2a, b)。

骨盤CT：直腸前壁に不均一なenhancementを伴う腫瘍と、直腸間膜内にリンパ節腫大を認めた(Fig. 2c)。

以上の所見と既往歴を考慮した結果、直腸子宮内膜癌を疑い、9月7日手術を施行した。

手術所見：上部直腸前壁の腫瘍が子宮・回腸に癒着・浸潤していたため、低位前方切除術（上方D2, 側方D1郭清）、子宮・両側付属器・回腸合併切除術を施行した。

切除標本：腫瘍の主座は粘膜下で、中心潰瘍を伴い、子宮・回腸と一塊となっていた。直腸間膜内のリンパ節は多発性に嚢胞状に腫大していた(Fig. 3)。

病理組織学的所見：粘膜下層に深に周囲結合織を伴った嚢胞状の内腔を形成する丈の低い円柱状の子宮内膜腺を認めた。これに接して腺癌の乳頭状増殖・浸潤を認めた(Fig. 4a~c)。浸潤は回腸におよび、嚢胞

<2001年12月12日受理> 別刷請求先：池田 公正
〒560 0055 豊中市柴原町4 14 1 市立豊中病院
外科

Fig. 1 Endoscopy demonstrated submucosal tumor with central ulceration in the anterior wall of the middle third of the rectum(a)and extramural cystic tumor(lymph nodes)in the lower third of the rectum(b) Barium enema examination revealed filling defect with irregular surface in the anterior wall of the middle third of the rectum (c)

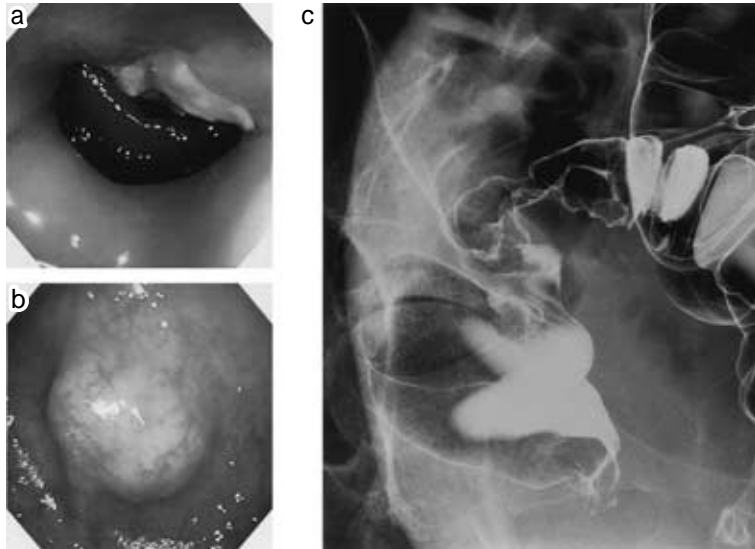


Fig. 2 (a) Pelvic MRI (T1 weighted image) showed a low intensity mass.(b) Pelvic MRI (T2 weighted image) showed a heterogenous intensity mass and high intensity cystic lymph node metastases in the mesorectum.(c) Pelvic CT showed tumor with heterogenous enhancement in the anterior wall of the rectum and low density lymph node metastases in the mesorectum.(d)Abdominal CT showed multiple cystic liver metastases 5 months after operation.

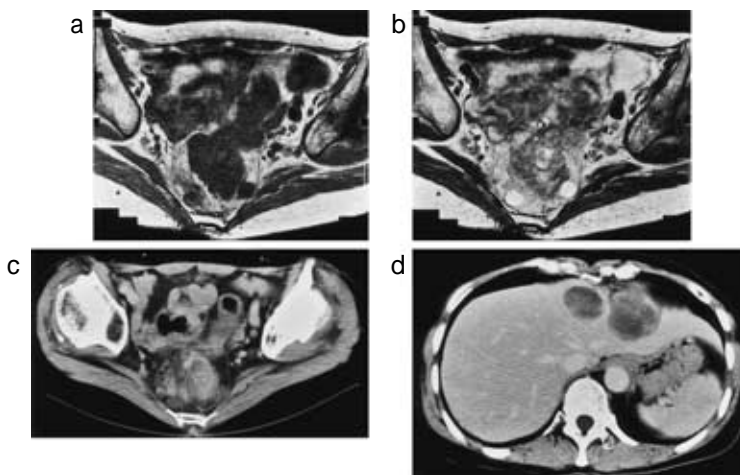
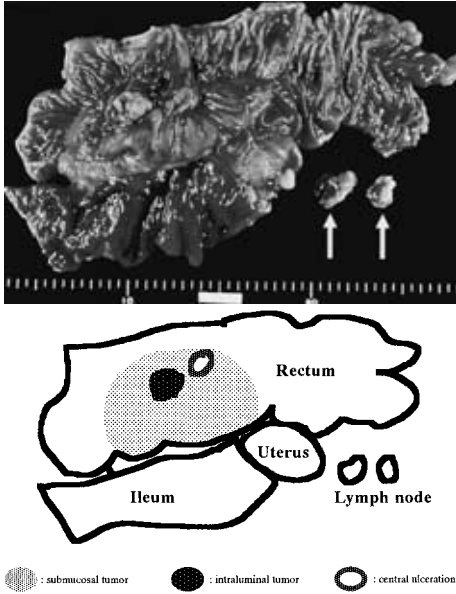


Fig. 3 Macroscopic findings of resected specimens and its shema.

The submucosal tumor with central ulceration was fixed firmly to the uterus and ileum. Lymph nodes in the mesorectum were enlarged like cysts (arrows)



状に腫大したリンパ節はすべて腺癌の転移であった (Fig. 4d). 子宮は筋腫を認めるのみで、両側付属器に異常は認めなかった.

術後経過：術後合併症なく、9月23日(術後17日)退院した.

退院後経過：2000年2月18日(術後5か月)腹部CTで肝両葉に嚢胞状の多発性肝転移が確認された (Fig. 2d). 3月23日 transcatheter arterial embolization(TAE)を施行したが効果がなく、4月より腹水が出現し、8月3日(術後10か月)死亡した.

考 察

子宮内膜症は子宮内膜組織が異所性に増殖する非腫瘍性疾患である. そのうち腸管子宮内膜症の発生頻度は、全子宮内膜症の12.3%と報告されている¹⁾. 好発部位は直腸・S状結腸72.4%、直腸膈中隔13.5%、以下小腸・盲腸・虫垂の順となっている²⁾. 発生原因には種々の説があるが³⁾、本症例は過去の子宮内膜症手術の際に直接(機械的)移植により直腸子宮内膜症が生じ、後に癌化した可能性が推測される.

子宮内膜症の癌化例のほとんどは卵巣に発生したものであり、腸管子宮内膜症の癌化例は極めてまれである. 1949年 Marxの報告以来自験例を含めて世界16

Fig. 4 Microscopic findings of resected specimens.

(a) Dilated cystic endometrial gland was adjacent to the endometrioid adenocarcinoma in the submucosal layer(HE stained. x 40)(b)The endometrial glands was surrounded by endometrial-type stroma (HE stained. x 100) (c)Endometrial adenocarcinoma showed papillary proliferation (HE stained. x 200)(d) The metastasis of endometrial adenocarcinoma was detected in the lymph node (HE stained. x 40)

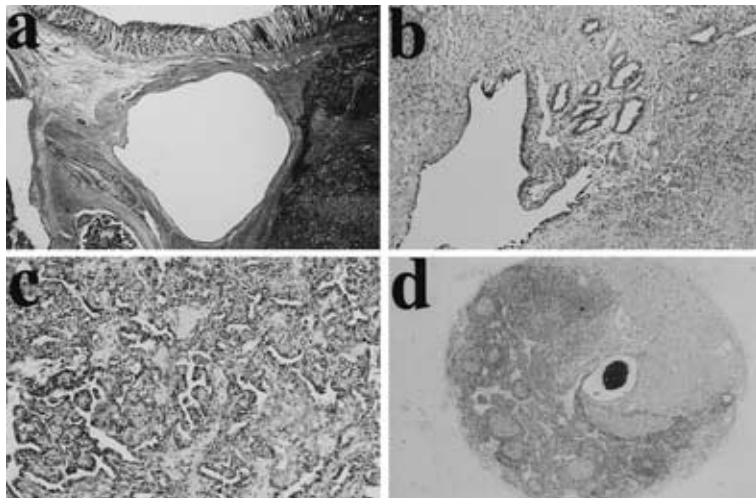


Table 1 Endometrial adenocarcinoma arising from intestinal endometriosis

| Case | Year | Author | Age | H/O EM | Location | Symptoms | LN meta | Prognosis |
|------|------|------------------------|-----|--------|-------------|-------------------|----------|-----------|
| 1 | 1949 | Marx ⁴⁾ | 48 | No | rectum | mass | negative | NA |
| 2 | 1956 | Weinrod ⁵⁾ | 59 | No | small bowel | tarry stool, pain | negative | DOD, 20yr |
| 3 | 1974 | Reintoft ⁶⁾ | 36 | Yes | rectum | mass | negative | DOD, 4mo |
| 4 | 1978 | Lott ⁷⁾ | 53 | Yes | rectum | melena | negative | NED |
| 5 | 1981 | Yamada ⁹⁾ | 44 | Yes | rectum | melena | negative | NED |
| 6 | 1991 | Yasui ¹⁰⁾ | 44 | No | rectum | obstruction | negative | NED, 10mo |
| 7 | 1996 | Sasaki ¹¹⁾ | 49 | No | rectum | melena | positive | DOD, 1mo |
| 8 | 2000 | Yantiss ⁸⁾ | 52 | Yes | sigmoid | obstruction | negative | NED, 1mo |
| 9 | 2000 | Yantiss ⁸⁾ | 66 | Yes | rectum | mass, pain | negative | NED, 38mo |
| 10 | 2000 | Yantiss ⁸⁾ | 74 | NA | sigmoid | obstruction | positive | DOD, 1yr |
| 11 | 2000 | Yantiss ⁸⁾ | 47 | Yes | rectum | mass, pain | negative | NED, 9mo |
| 12 | 2000 | Yantiss ⁸⁾ | 67 | Yes | rectum | vaginal bleeding | negative | NED, 13yr |
| 13 | 2000 | Yantiss ⁸⁾ | 48 | Yes | rectum | peritonitis | negative | NA |
| 14 | 2000 | Yantiss ⁸⁾ | 60 | NA | colon | NA | positive | Rec, 1yr |
| 15 | 2000 | Yantiss ⁸⁾ | 62 | NA | sigmoid | NA | negative | NA |
| 16 | 2001 | Ikeda | 56 | Yes | rectum | melena | positive | DOD, 10mo |

NED : no evidence of disease, DOD : dead of disease, Rec : recurrence, NA : not available, H/O EM : history of endometriosis

例⁴⁾⁻⁸⁾, 本邦では1981年山田の報告以来4例目である⁹⁾⁻¹¹⁾。世界16例の集計では(Table 1), 年齢は36~74歳(平均54.1歳)で腸管子宮内膜症に比べて平均年齢で8歳高齢である。9例に子宮内膜症の既往歴を認めた。部位は直腸11例, S状結腸3例, 結腸(部位不明)1例, 小腸1例で, 臨床症状は下血5例, 腫瘍・腹痛5例, 腸閉塞3例, 腹膜炎1例, 性器出血1例であった。

腸管子宮内膜症の内視鏡下生検による確定診断率は9~30%と低く¹²⁾⁻¹⁴⁾, また癌との鑑別が困難な症例も存在するため¹⁵⁾⁻¹⁶⁾, その癌化例の術前確定診断は極めて困難である。本症例では生検で確定診断は得られなかったものの, 大腸内視鏡, 骨盤CTおよびMRI検査による直腸間膜内のリンパ節腫大(転移)の診断が, 悪性を強く示唆する所見として有用であった。

術前診断のみならず, 切除標本においても病理組織学的診断は困難である⁸⁾。1925年Sampson¹⁷⁾が提唱した子宮内膜症癌化例の判定基準は(1)良性と悪性(癌)の子宮内膜組織が接して共存する(2)良性および悪性の組織像が子宮体部の非癌部および癌部と同じような組織学的近似型を示す(3)癌は子宮内膜組織内に生じ, 他に原発巣が存在しない。以上の3項目であり, さらに1996年Scott¹⁸⁾は(4)良性子宮内膜症から子宮内膜癌への直接的な移行がみられる。という追

加基準を提言している。本症例は, Scottの追加基準は確認できなかったものの, Sampsonの提唱した3つの判定基準を満たしており, 子宮内膜症の癌化例と組織学的に診断された。

本疾患の予後は不良と考えられ, 16例中5例が癌死している。リンパ節転移を認めた例は本症例を含めて4例で, そのうち3例は術後1年以内に癌死, 1例は術後1年で再発しており, リンパ節転移は特に予後不良を示唆する因子と推測される。

今後, 腸管子宮内膜症およびその癌化例の診断法や治療法の確立が望まれるところである。

文 献

- 1) Macafee CHG, Greer HLH : Intestinal endometriosis, a report of 29 cases and a survey of the literature. J Obstet Gynaecol, Br Comm 67 : 539-555, 1960
- 2) Masson JC : Present conception of endometriosis and its treatment. Trans Western Surg Assoc 53 : 35-50, 1945
- 3) 小平 進 : 腸管子宮内膜症の病態. 胃と腸 33 : 1323-1328, 1998
- 4) Marx H : Ein Beitrag zur Frage der bosartigen Entartung der Endometriose. Chirurgie 20 : 441-443, 1949
- 5) Weinrod NM, Bagg JF, Sharnoff JG : Adenoacanthoma in ovarian and intestinal endometriosis. Re-

- port of a case. *Obstet Gynecol* 7 : 161-164, 1956
- 6) Reintoft I, Lange AP, Skipper A : Coincidence of granulosa-cell tumour of ovary and development of carcinoma in rectal endometriosis. *Acta Obstet Gynecol Scand* 53 : 185-189, 1974
- 7) Lott JV, Rubin RJ, Salvati EP et al : Endometrioid carcinoma of the rectum arising in endometriosis. report of a case. *Dis Colon Rectum* 21 : 56-60, 1978
- 8) Yantiss RK, Clement PB, Young RH : Neoplastic and pre-neoplastic changes in gastrointestinal endometriosis. *Am J Surg Pathol* 24 : 513-524, 2000
- 9) 山田紀彦, 北村 脩, 田村勝洋ほか : 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
- 10) 安井元司, 安藤修久, 野崎英樹ほか : 直腸子宮内膜症癌化の1例 . 日外会誌 93 : 651-653, 1992
- 11) 佐々木秀, 三好信和, 平田敏明ほか : 直腸腔中隔原発子宮内膜症癌化の1例 . 日臨外医会誌 57 : 2268-2272, 1996
- 12) Meyers WC, Kelvin FM, Jones RS : Diagnosis and surgical treatment of colonic endometriosis. *Arch Surg* 114 : 169-175, 1979
- 13) 松隈則人, 松尾義人, 鶴田 修ほか : 腸管子宮内膜症の2例 本邦報告例78例の検討を含めて . *Gastroenterol Endosc* 31 : 1577-1584, 1989
- 14) 折居 裕, 真口宏介, 中沢郁生ほか : 内視鏡的直視下生検により確定診断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
- 15) 高島茂樹, 富田富士夫, 桐山正人ほか : イレウス症状を呈し癌と鑑別が困難であったS状結腸・直腸子宮内膜症の1例 . 消外 7 : 363-366, 1984
- 16) 丸山規雄, 成高義彦, 細川俊彦ほか : 腸閉塞をきたしたS状結腸子宮内膜症の1例 . 日本大腸肛門病会誌 42 : 420-424, 1989
- 17) Sampson JA : Endometrial carcinoma of the ovary arising in endometrial tissue in that organ. *Arch Surg* 10 : 1-72, 1925
- 18) Scott RB : malignant change in endometriosis. *Obstet Gynecol* 2 : 283-289, 1953

A Cases of Endometrioid Carcinoma with Lymph Node Metastasis Arising from Endometriosis of the Rectum

Kimimasa Ikeda, Takashi Shimano, Masashi Kitada, Yasuo Tsukahara, Takashi Shibata,
Yukio Fukushima, Shinsuke Hata, Kenzou Akagi, Junya Fujita and Masaki Okuyama
Department of Surgery, Toyonaka Municipal Hospital

We report a very rare case of endometrioid adenocarcinoma arising from endometriosis of the rectum. A 56-year-old woman referred for melena was found in colonoscopy and barium enema to have a submucosal tumor with central ulceration in the anterior wall of the middle third of the rectum. Pelvic CT and MRI indicated cystic lymph node metastases in the mesorectum. The tumor was located in the anterior wall of the rectum, fixed to the uterus and ileum. We conducted low anterior resection with additional resection of the uterus, bilateral adnexa and ileum. Histopathological study showed endometrial glands surrounded by stroma adjacent to adenocarcinoma that had metastasized to the lymph nodes, leading to a diagnosis of endometrioid adenocarcinoma arising from endometriosis of the rectum. Multiple cystic liver metastases were detected 5 months later and the patient died 10 months thereafter. Lymph node metastasis is thus a prognostic factor in intestinal endometrioid carcinoma.

Key words : endometrioid carcinoma, endometriosis, rectum

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 35 : 445-449, 2002]

Reprint requests : Kimimasa Ikeda Department of Surgery, Toyonaka Municipal Hospital
4-14-1 Shibahara-cho, Toyonaka, 560-0055 JAPAN