

肛門管癌に高度な Fournier 症候群を合併した 1 例

武蔵野総合病院外科

椎野 豊 尾碇 俊造

Fournier 症候群は、外・会陰部の皮下組織に生じる壊死性筋膜炎で、早期に適切な治療を施さないと予後が不良となるまれな疾患である。症例は 62 歳の男性。痔瘻を繰り返し起こしていた。高熱、左上臀部・大腿・下腿後面の腫脹のため来院。応急的に肛門周囲を切開排膿した。4 日後、人工肛門を造設し、左上臀部、大腿、下腿の切開排膿、洗浄、ドレナージを施行した。肛門は変形、狭窄していた。細菌は大腸菌および 4 種類の嫌気性菌であり、術後高圧酸素療法を施行した。2 週後、adenocarcinoma と診断され、腹会陰式直腸切断術を施行した。腫瘍は肛門管の 3 型進行癌、中分化型腺癌であった。進達度は a2, #251L, 271R, 271L, 292L, 293L にリンパ節転移を認めた。非常に広範囲の Fournier 症候群に、肛門管癌を合併した極めてまれな症例を経験した。

はじめに

Fournier 症候群は、外陰部、会陰部の皮下組織に生じ、急激に拡大、進行、憎悪する壊死性筋膜炎で、早期に適切な治療を施さないで予後が不良となるまれな疾患である¹⁾。近年本疾患はしばしば報告されるようになったが、依然として致死率は非常に高く改善されていない²⁾。通常は外陰部または会陰部に限局されるが、広範囲の例では背部、大腿部、後腹膜などに進展する。下腿までの報告例は無い^{3,4)}。また、直腸、肛門悪性腫瘍を合併した報告もほとんど無い⁵⁾。今回我々は、下腿まで達した非常に広範囲の Fournier 症候群で、さらに肛門管癌を合併した極めてまれな症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：62 歳、男性

主訴：肛門部痛、発熱

家族歴：特記すべきこと無し。

既往歴：二十数年前より高血圧、高脂血症、心房細動。45 歳、48 歳、52 歳時に痔瘻手術。糖尿病の既往は無し。

現病歴：2001 年 12 月 4 日より肛門部痛が出

現。その後食欲低下、発熱が生じ、肛門部痛の悪化、全身衰弱となり 12 月 22 日救急外来受診した。

入院時現症：身長 168cm、体重 67kg 体温 39.2℃、血圧 78/66mmHg、脈拍 90/分、左上臀部から左大腿全面、下腿後面に達する発赤、熱感、腫脹が認められた。肛門、直腸には硬結、変形がみられた。

入院時検査所見：白血球が 10,900/mm³、CRP が 31.7mg/dl と炎症反応が亢進し、血小板が 112,000/mm³ と若干減少していた。

入院後経過：応急的に左臀部を切開し排膿、ドレナージした (Fig. 1)。ショック症状は絶食、抗生剤投与などで寛解した。その後の採血では DIC への進行は認められなかった。血液培養、血中エンドトキシンはともに陰性であった。膿からは *Escherichia coli*, *Bacteroides uniformis*, *Peptostreptococcus prevotii*, 黒色集落性グラム陰性桿菌, *Fusobacterium varium* の好気性、嫌気性混合感染が認められた。痔瘻、肛門周囲膿瘍に起因した左臀部、大腿、下腿の壊死性筋膜炎と診断し、12 月 26 日、改めて全身麻酔下に手術を施行した。人工肛門を造設、便路変更するとともに、左上臀部、左大腿、下腿を数箇所及び約 20cm ずつ切開し、排膿、洗浄、デブリードメント、ドレナージした (Fig. 2)。大腿・下腿部では、筋膜を切開し、筋束を圧

Fig. 1 The buttocks, left thigh and left calf showed erythema and swelling even after an initial incision in the perianal area.



Fig. 2 Extended incisions, debridement and drainage from the perianal area to the left calf were performed with a concurrent creation of a sigmoid colostomy for fecal diversion.



迫すると、組織から多量の膿汁が流出した。痔瘻に関しては、3時方向に1次口を認めた。肛門は度重なる痔瘻のため、変形し、硬く狭窄しており、lay open とするとともに、硬結がみられたため、ここより組織を採取し、生検した (Fig. 3)。術後もデブリードメント、洗浄を繰り返すとともに、高圧酸素療法を施行した。

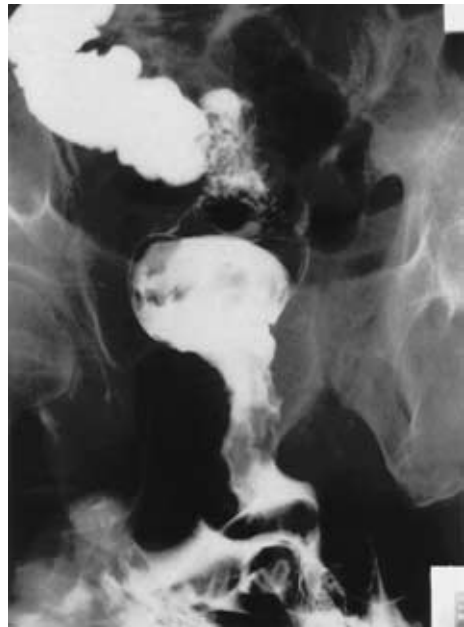
注腸検査：肛門縁から口側に約 8cm 長の不整、全周性狭窄を認めた (Fig. 4)。

腹部・骨盤 CT：仙骨前面に不整形の 45mm 大

Fig. 3 The anus and rectum showed deformity and stricture subsequent to repetitive anal fistula. Histopathology later on revealed adenocarcinoma.



Fig. 4 An anorectography showed an irregularly constricted lesion as long as 8cm.



の石灰化を伴う低～等吸収領域を認めた。造影 CT では低吸収の腫瘤として描出された (Fig. 5)。肝に転移所見は認められなかった。

骨盤 MRI：T1 強調ではやはり不整形の 45mm 大の低信号、ガドリニウムによる造影では若干信号度は高くなり、T2 強調では heterogeneous な

Fig. 5 A pelvic CT disclosed a 45mm low-density mass with partial calcifications in front of the sacrum. No enhancement effect was seen to the mass.

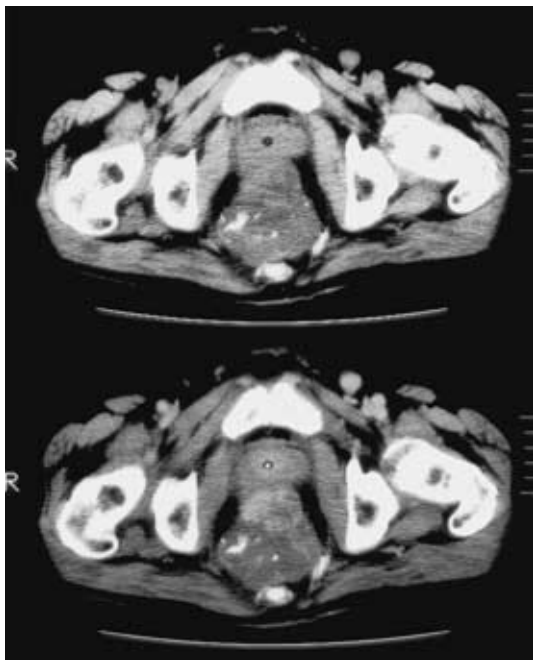
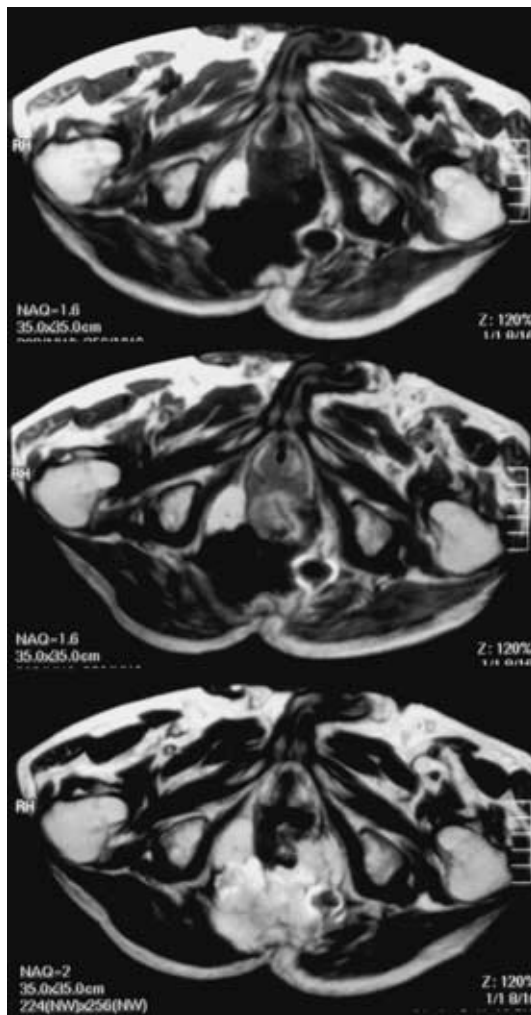


Fig. 6 The upper figure (T1) concealed an irregular low intensity mass, middle figure demonstrated slight enhancement with gadolinium and lower (T2) showed high intensity 45mm mass.



高信号領域として捉えられた (Fig. 6) .

組織検査の結果, adenocarcinoma と診断された . 腫瘍マーカーは CEA 8.6ng/ml , CA19-9 62.9 U/ml と上昇していた . 全身状態も改善したため , 腹会陰式直腸切断術を施行した . 遠隔転移は無かった .

切除標本 : 腫瘍は肛門縁から 15mm に存在する 45 × 40mm のほぼ全周性の 3 型進行癌で , 外膜面では一部脂肪組織に浸潤していた (Fig. 7) .

病理組織所見 : 異型細胞が不規則な癒合腺管を形成し , 一部は胞巣状に浸潤増殖していた . 粘液産生が盛んな部分も見られた . 中分化型主体の腺癌と考えられた . 浸達度は a2 , #251L , 271R , 271L , 292L , 293L にリンパ節転移を認めた .

術後経過 : 全身状態は順調に回復したが , 左臀部 , 大腿部の切開 , デブリードメントした部位の肉芽の上昇が不良で , さらに MRSA の感染も伴ったため , 創の回復に時間を要した .

考 察

Fournier 症候群はその定義 , 分類 , 原因が歴史的に変遷してきている⁶⁾⁷⁾ . 現在では本症は , 外陰部 , 会陰部の皮下組織に生じ , 急激に拡大 , 進行 , 憎悪する壊死性筋膜炎で , 早期に適切な治療を施さないと予後が不良となるまれな疾患であると考えられている⁸⁾ . Eke⁴⁾による 1,726 例の論文では , 致死率 16% , 糖尿病合併患者が多く , 悪性腫瘍の合併は多くない . 外陰部 , 会陰部 , 背部 , 大腿部

Fig. 7 Histopathology revealed stage III(B T2N2M0) moderately differentiated adenocarcinoma.



などに限られるものがほとんどであり、高圧酸素療法、早期の積極的外科治療が有効とされている⁴⁾。医学中央雑誌で論文、会議報告例、ならびにその引用文献を検索したが、本邦での報告例は 200 例に満たない^{9)~11)}。肛門・直腸悪性腫瘍合併例は無い。Medline で海外の論文を検索した結果でも、肛門・直腸悪性腫瘍合併例は 1 論文のみであった⁵⁾。この症例報告は糖尿病を合併した直腸癌で、やはり広範囲のデブリードメント、人工肛門造設、高圧酸素療法で救命した後、腹会陰式直腸切断術を施行している⁵⁾。

広範囲の例では側胸部、大腿部に拡大していた報告はあるが、下腿まで達する壊死性筋膜炎は見られなかった³⁾¹²⁾¹³⁾。近年、泌尿器科系、外科系学会を中心にしばしば報告されるようになったが、治療の劇的な進歩にも関わらず依然として致死率は非常に高く、改善されていないのが現状である⁸⁾¹⁴⁾。

Fournier 症候群の救命治療は可及的早期の十分な洗浄、デブリードメント、ドレナージが必須であることはほぼ異論の無いところである²⁾¹⁾¹⁵⁾。洗浄液についてはさまざまな種類が使用されているが、これによる良悪は無く、十分な洗浄が肝要であると思われる³⁾¹⁶⁾。抗生剤の投与は必要であるが、十分なデブリードメント、ドレナージが前提である²⁾¹⁵⁾。ドレナージし切れない場合もあり、特に敗血症となった場合には適切な抗生剤投与が

予後を決めかねない¹⁶⁾。混合感染のことが多く、経時的に菌交代現象も起こりうるため薬剤感受性を確認しながら複数の抗生剤が必要なこともある⁶⁾。高圧酸素療法の有効性は数多く報告されているが、必須とする根拠は無く、治療後劇的に改善されたという報告は無い¹⁷⁾。しかしながら嫌気性菌による感染が多く、不完全なドレナージの症例には理論的には有効であるため、本症例でも施行した。エンドトキシンショック、DIC へと陥った場合には吸着療法、抗ショック療法、抗 DIC 療法なども必要となる¹⁵⁾。来院時にショック状態であったかどうかはその後の経過に関与しないようである¹⁶⁾。Olsofka ら²⁾によると、来院時、腎機能障害のみられた老人は特に予後が不良であるとしている。便路変更は救命治療には不要だが、創傷治癒の面からは有用である。いずれにせよ、まず本疾患の認識が大切であり、致死率が高いことを念頭におき、可及的早期でかつ十分な洗浄、デブリードメント、ドレナージを施行することが重要である²⁾。

本症例のように全身状態が劣悪で、救命処置に気を取られすぎると癌の合併を見落とす危険性がある。本症例のように肛門の変形が著しく、硬結しているとなおさらで、組織生検は必須である。ときに画像診断でも見逃しかねない。痔瘻を繰り返すと注腸検査で直腸が不整、狭窄像を示し、CT でも炎症との鑑別が困難なこともある¹⁸⁾。Fournier 症候群は、糖尿病、透析患者、ステロイド治療患者、アルコール中毒症など compromised host に合併しやすい⁴⁾。同様の理由で悪性腫瘍により免疫力が低下している場合の発症も報告されているが、本症例では肛門管癌による客観的な免疫低下は認めなかった。また、肛門管癌が直接罹患部位に関与している報告は無かった³⁾⁵⁾。この事由からも、本症例において肛門管癌は Fournier 症候群の直接原因であるとは考えがたいが、度重なる痔瘻や進行癌で生じた癒痕、変形、硬結により、急速に膿が疎で柔軟な組織に入り込み、高度の Fournier 症候群となったと考えられた。

Fournier 症候群はその致死率が高いことを念頭におき、診断がつきしだい可及的早期でかつ十

分な洗浄, デブリードメント, ドレナージを施行することが重要であり, さらにまれに悪性腫瘍の合併が見られ, 臨床診断, 画像診断などでも紛らわしいことがあるため, 組織生検も同時に施行することが必要であると考えられた.

文 献

- 1) Spirnak JP, Resnick MI, Hampel N et al : Fournier 's gangrene : report of 20 patients. J Urol 131 : 289 291, 1984
- 2) Olsofka JN, Carrillo EH, Spain DA et al : The continuing challenge of Fournier 's gangrene in the 1990s. Am Surg 65 : 1156 1159, 1999
- 3) 若杉純一, 金 正文, 藤田康一郎ほか : 痔瘻から発生したガス産生性壊疽性筋膜炎 (Fournier 's Gangrene) の1例 . 日本大腸肛門病会誌 42 : 1254 1257, 1989
- 4) Eke N : Fournier 's gangrene : a review of 1726 cases. Br J Surg 87 : 718 728, 2000
- 5) Gamagami RA, Mostafavi M, Gamagami A et al : Fournier 's gangrene : an unusual presentation for rectal carcinoma. Am J Gastroenterol 93 : 657 658, 1998
- 6) 阪本研一, 金武和人, 二村直樹ほか : 糖尿病患者の肛門周囲膿瘍より続発した Fournier 's gangrene の1例 . 日外科系連会誌 22 : 946 949, 1997
- 7) Thomas JF : Fournier 's gangrene of the penis and the scrotum. J Urol 75 : 719 727, 1956
- 8) Ochiai T, Ohta K, Takahashi M et al : Fournier 's gangrene : report of six cases. Surg Today 31 : 553 556, 2001
- 9) 児島康行, 井上彦八郎, 藤原祥子ほか : 糖尿病に合併した Fournier 's gangrene の1例 . 泌尿器外科 6 : 1133 1136, 1993
- 10) 板倉宏尚, 井上滋彦, 柳沢良三ほか : Fournier 's gangrene の1例 . 泌尿器外科 4 : 637 640, 1991
- 11) 上原圭介, 長谷川洋, 小木曾清二ほか : ループス腎炎に合併した Fournier 症候群の1例 . 日腹部救急医学会誌 20 : 711 714, 2000
- 12) 柴原弘明, 長谷川洋, 小木曾清二ほか : 右側胸部・前腹壁に及ぶ壊死性筋膜炎をきたした Fournier 症候群の1例 . 日腹部救急医学会誌 22 : 567 571, 2002
- 13) 篠島弘和, 榊原尚行, 藤田信司ほか : フルニ工壊疽の2例 . 臨泌 48 : 970 972, 1994
- 14) 太田正佳, 小山久夫, 勝又裕子 : フルニ工壊疽の4症例の治療経験 . 日災医学会誌 47 : 787 793, 1999
- 15) 高木 融, 鶴井 茂, 多村幸之進ほか : Fournier 症候群の2例 . 日本大腸肛門病会誌 54 : 329 333, 2001
- 16) 水野 章, 桜井 敏, 保里恵一ほか : 外科領域における重症壊死性筋膜炎 特に Fournier 's gangrene について . 化療の領域 5 : 1307 1315, 1989
- 17) Korhonen K : Hyperbaric oxygen therapy in acute necrotizing infections with a special reference to the effects on tissue gas tensions. Ann Chir Gynaecol Suppl 214 : 7 36, 2000
- 18) 天野信一 : Fournier 's gangrene による肛門機能不全に対し括約筋形成, 大殿筋移行術を施行した1例 . 日臨外会誌 62 : 2448 2454, 2001

A Case of an Anal Canal Cancer Manifesting As an Extended Fournier 's Gangrene

Yutaka Shiino and Shunzo Ozaki
Department of Surgery, Musashino General Hospital

Fournier 's gangrene is a rare, rapidly progressive and potentially fatal gangrenous infection of the perineum and genitalia. A 62-year-old man, who had previously undergone three operations for the anal fistula, was hospitalized complaining of a high-grade fever and anal pain. An initial incision was made to drain the abscess in the perianal area. Four days later, extended incisions, lavage, debridement and drainage all the way down to the left calf were performed in conjunction with the creation of a sigmoid colostomy for fecal diversion. Rectal examination revealed a fixed and obstructing induration. Abscess cultures yielded *Escherichia coli* and four other anaerobic organisms. Hyperbaric oxygen therapy was delivered for ten days. Following a histopathologic diagnosis of anal canal cancer, a curative abdominal perineal resection was performed. Histopathology revealed a stage IIIB (T2N2M0) moderately differentiated adenocarcinoma. We experienced a rare case of an advanced adenocarcinoma of the anal canal manifesting as a perianal abscess progressing to extended Fournier 's gangrene.

Key words : Fournier 's gangrene, anal canal cancer, perianal abscess

[Jpn J Gastroenterol Surg 36 : 1641 1645, 2003]

Reprint requests : Yutaka Shiino Department of Surgery, Musashino General Hospital
977 9 Obukuroshinden, Kawagoe, 350 1167 JAPAN