

症例報告

## 脱水, 電解質異常を呈し肛門外に脱出, 嵌頓した直腸絨毛状腺腫の1例

石狩病院外科, 北海道大学大学院医学研究科癌医学専攻癌診断治療学講座腫瘍外科学分野\*

安友 紀幸 倉島 庸\* 近藤 哲\*

脱水, 電解質異常を呈し肛門外に腫瘤脱出, 嵌頓した直腸絨毛状腺腫の1例を経験したので報告する. 症例は76歳の女性で, 全身倦怠感, 脱水, 電解質異常, 腎機能障害(Na 125mEq/l, K 2.1mEq/l, Cl 88mg/l, BUN 57.9U/l, CREA 1.36mg/dl)にて入院になった. 脱水, 電解質異常の補正により全身倦怠感, 腎機能障害は改善した. 症状改善後に2年前から認めていた“脱肛”の嵌頓を生じた. 嵌頓腫瘤は手拳大で柔らかく絨毛状を呈し, 表面は浮腫状で多量の粘液の付着と一部出血を認めた. 大腸内視鏡検査にて, 腫瘍は歯状線直上より口側直腸に径10cmの3/4周を占め, 生検の結果絨毛状腺腫と診断された. 腫瘍径の大きさより悪性化の可能性も考えられ, 切除線を歯状線におく超低位前方切除術を行った. 病理組織学的所見では, Tubulo-villous adenoma with severe atypia で悪性病変は認めず, 断端は陰性であった. 術後脱水, 電解質異常の再発は認めていない.

### はじめに

大腸絨毛状腺腫は, 癌化率の高さ, 多彩な症状, 形態学的特徴より興味深い疾患である<sup>1)</sup>. 今回, 我々は全身倦怠, 電解質異常, 肛門外腫瘤脱出, 嵌頓を呈した症例を経験したので報告する.

### 症 例

患者: 76歳, 女性

主訴: 全身倦怠

既往歴: 2001年 脳梗塞

現病歴: 2004年5月初旬から全身倦怠感が生じ近医を受診した. 電解質異常を指摘され6月15日当院内科紹介, 入院となった.

現症: 身長151cm, 体重39kg, 眼瞼結膜に軽度の貧血を認めたが, 眼球結膜に黄疸は認めなかった. 舌は乾燥し脱水の所見を認めた. 胸腹部に異常はなく, 表在リンパ節は触知しなかった.

入院時検査所見: 白血球 $6,800/\text{mm}^3$ , 赤血球 $391 \times 10^3/\text{mm}^3$ , Hb 12.5g/dl, 血小板 $25.6 \times 10^4/\text{mm}^3$ , TP 6.0g/dl, T-Bil 0.5mg/dl, GOT 23U/l, GPT 33U/l, BUN 57.9U/l, CREA 1.36mg/dl, Na

125mEq/l, K 2.1mEq/l, Cl 88mg/l, Ca 7.8mg/dlと著明な低Na血症, 低K血症と腎機能の低下, 貧血を認めた. 腫瘍マーカーはCEA 1.4ng/ml (<2.5), CA19-9 48.7U/ml (<37)とCA19-9の軽度の上昇を認めた.

入院後経過: 早急に脱水, 電解質異常の補正を行い, 腎機能障害, 全身倦怠感などの症状は改善した. 患者は2年前頃から肛門外に腫瘤の脱出還納を繰り返し, 手動的に還納していた. 入院後も本人はいわゆる“脱肛”と考え診察を希望していなかったが, 腫瘤の肛門外嵌頓を生じ当科へ紹介受診された. 腫瘤は手拳大で柔らかく絨毛状を呈し, 表面は浮腫状で多量の粘液の付着と一部に出血を認めた (Fig. 1). 腫瘤の還納時にはさらに多量の粘液が分泌し出血も認めた.

注腸造影X線検査: 下部直腸内に約10cmのカリフラワー様の腫瘤陰影を認めた (Fig. 2).

大腸内視鏡検査: 肛門の歯状線より8mm口側から前壁を中心に, 10cmにわたる柔らかく表面が粗大結節状で易出血性の隆起性病変を認めた (Fig. 3). 生検の病理組織学的所見はTubulo-villous adenoma with severe atypiaであった.

**Fig. 1** Incarcerated tumor was fist-sized, soft, easy-bleeding and velvet-like mass with much mucous on the surface.

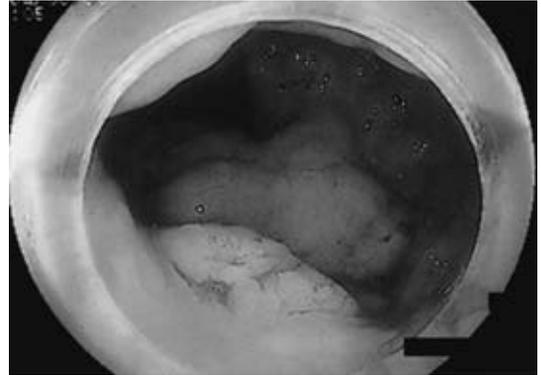


**Fig. 2** Barium enema showed a tumor, about 10 cm in diameter and having a cauliflower-like appearance in the lower rectum.

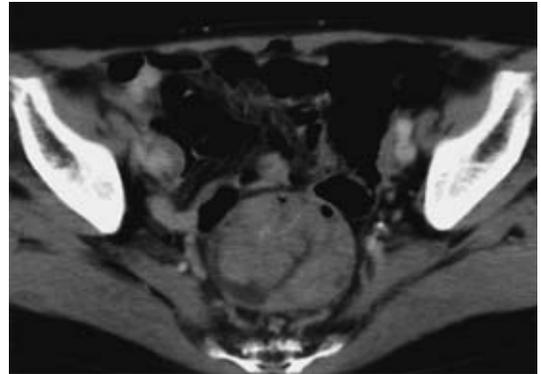


腹部CT：直腸内に径10cmの部分的に造影される腫瘍を認めた。腫瘍の周囲臓器への浸潤、リンパ節腫脹、肝内病変などは認めなかった (Fig. 4)。

**Fig. 3** Colonoscopy revealed the soft tumor with a granular surface 8 mm proximal to the dentate line.



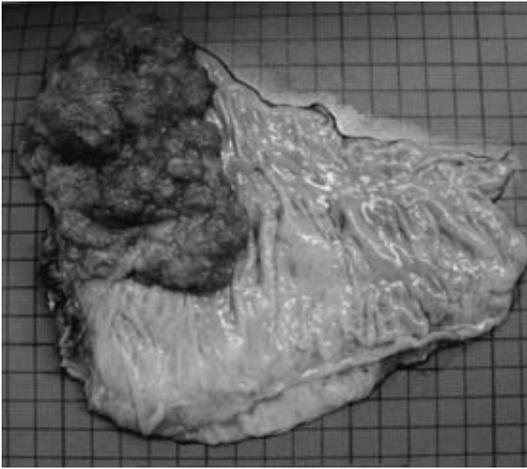
**Fig. 4** CT findings showed partially enhanced tumor in the lower rectum with no invasive sign and lymph node swelling.



以上より、脱水、電解質異常、嵌頓症状を呈した直腸絨毛状腺腫と診断した。悪性病変併存の可能性も高く2004年7月14日に手術を施行した。

手術所見：中下腹部正中切開にて開腹した。腹水、肝転移、腹膜播種を認めず、腹膜反転部にてわずかに腫瘍を触れた。術前CTではリンパ節腫大を認めず、直腸剥離をtotal mesorectal excision (以下、TMEと略記)の層で行った。歯状線直上から約10cm口側の直腸前壁に3/4周の広基性隆起性病変を認めた。歯状線において切断、吻合する内括約筋合併切除超低位前方切除術を施行し、肉眼所見では断端陰性が得られた。摘出標本にて

Fig. 5 Macroscopic findings showed a flat elevated velvet-like tumor, 10×7 cm in size.



潰瘍, 硬結など認めず, かつ術中所見にてもリンパ節腫大所見を認めなかった. 癌が併存しても深達度はmと考えられたためD1郭清とし, 回腸ループストマ造設術を付加した.

摘出標本所見: 直腸前壁を中心に3/4周を占める10×7cmの表面絨毛状の柔らかい広基性隆起性病変であった (Fig. 5).

病理組織学的所見: 絨毛成分を含む不整な腺管構造, 核の腫大, 多層化を認めた. 浸潤像などの悪性所見はなくTubulo-villous adenoma with severe atypiaで, 断端は陰性であった (Fig. 6a, b).

術後経過: 脱水, 電解質異常, 貧血の再発はなく, 術後24病日に退院された. 2005年1月18日に人工肛門閉鎖術を行い, 現在まで再発を認めていない.

## 考 察

大腸絨毛状腺腫は, 下部大腸, 特に直腸に好発し, 弾性に富みかつ水平方向の進展を特徴とする<sup>2)</sup>. 一般に, 症状の発現が遅く, 発見時にかなり大型化していることが多い. 臨床症状として出血, 下痢, 粘液便などを多く認めるが, 腫瘍が大きくなれば大量の粘液排泄を原因とする血清電解質異常, 脱水など呈するdepletion syndromeが生じる時や<sup>3)</sup>, 肛門外に腫瘍が脱出, まれに嵌頓することもある<sup>14)</sup>. 自験例も2年前から腫瘍の肛門外脱出

を認めていた. しかし, 腹痛, 腹部膨満, 便秘などの症状はなく, 容易に還納できたために発見が遅れ, 今回の嵌頓を契機に診断できた.

Depletion syndromeは本疾患の約2%に認め, 病悩期間は平均約2.5~5.4年で60~70歳代の女性, 最大径10cm以上の病変に多い<sup>3)5)</sup>. 腫瘍から分泌される粘液の過剰排泄が原因と考えられる<sup>6)</sup>が, さらに摂取量と排泄量の均衡破綻, 粘膜の選択的な再吸収の変化<sup>7)</sup>, あるいは排泄を促進する物質として腫瘍由来のcyclic AMP, PEG<sub>2</sub>なども指摘されている<sup>8)</sup>. Depletion syndromeに対する不十分な認識, 管理から筋力低下, 意識障害, 腎障害, 心筋障害などに移行することがあり注意が必要である<sup>3)5)8)</sup>.

欧米におけるdepletion syndromeの報告はMEDLINEによる検索にて1954年から147例で<sup>9)</sup>, 本邦では医学中央雑誌により1971年より47例であった<sup>5)10)11)</sup>. 腫瘍脱出は絨毛状腺腫の17%に生じるとされ<sup>12)</sup>, 1988年以後に報告された4例はすべて早期癌で, 3例が歯状線直上に存在していた. 自験例と同様にdepletion syndromeと腫瘍脱出を合併したのは1例であった<sup>14)13)14)</sup> (Table 1).

病理組織学的に本疾患は腫瘍表面が微細絨毛状で脆く一部は脳回状となっている. 粘膜筋板にほぼ垂直に走る細い間質を軸として高円柱の腫瘍細胞が著しく乳頭状に増殖し, 腫瘍細胞は種々の程度の異型を呈する<sup>15)</sup>.

本疾患は腫瘍径が8cm以上の場合癌化率は83%とされ, 腫瘍の大型化に伴い癌化率が高くなっている. しかし, 腫瘍径が8cm以上であっても58%の症例で壁深達度がm以下であり, 腫瘍径の大きさが壁深達度を反映していない<sup>16)</sup>. つまり, 肉眼的に潰瘍や硬結などの浸潤癌を示唆する所見がない時には局所切除が可能である.

本疾患の約90%以上が直腸, S状結腸に発生する. 特に, 直腸病変において癌化率, 壁深達度などを十分に踏まえ肛門機能の温存を考え, 過大手術にならないようにすべきである.

自験例は径が10cmであり, 腫瘍脱出症例はすべて癌を有していたことから, 癌の存在を念頭において手術を行った. 術式は, 腫瘍が歯状線直上

Fig. 6 a : Roupe view of the cross section : villous proliferation with numerous finger like process b : High magnification microscopic examination : the tumor was tubulo-villous adenoma with no malignancy. (H.E.×10)

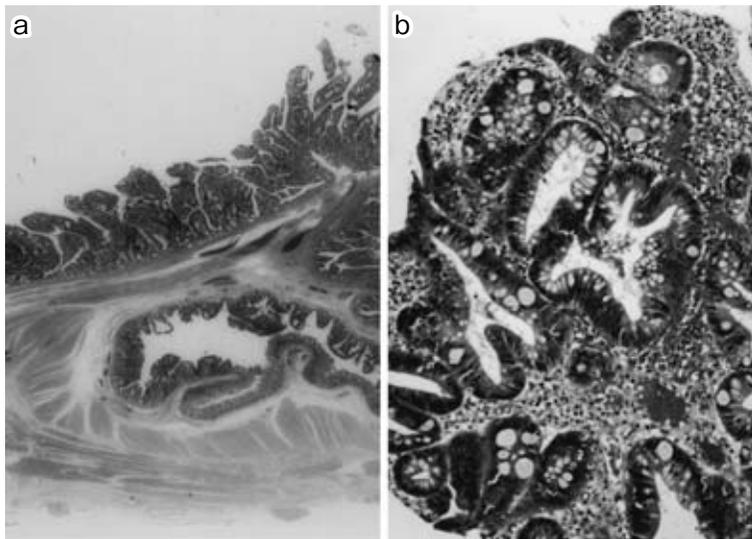


Table 1 Reported cases of villous adenoma prolapsed through the anus (1988 ~)

No	Author (year)	Age	Sex	Therapy	Size (cm)	Location	Focal cancer	Depth	DS
1	Izumi <sup>4)</sup> (1992)	62	F	Miles	9×7	right above DL	+	sm	-
2	Shibahara <sup>1)</sup> (1996)	82	F	TAR	5.5×4.5×4.0	5cm above DL	+	m	-
3	Yanabu <sup>13)</sup> (1999)	58	F	Miles	14×12	right above DL	+	m	+
4	Nonaka <sup>14)</sup> (2004)	65	M	TAR	11.4×9.0×4.8	right above DL	+	m	-
5	Our case (2004)	76	F	SLAR	10×7	8mm above DL	-		+

TAR : transanal resection, SLAR : super-low anterior resection, DS : depletion syndrome, DL : dentate line

の直腸前壁を主体とする3/4周の広基性隆起性病変のため、経肛門的局所切除は困難と考えられた。歯状線にて切断、吻合する内括約筋合併切除超低位前方切除術を施行し、肉眼所見にて断端陰性が得られ直腸切断術を回避できた。かつ、摘出標本にて潰瘍、硬結などの所見は認められず、また、術前のCT所見に加え、術中所見にてリンパ節腫大所見を認めなかった。癌の併存があっても深達度はmと考えられたためTMEの層で直腸剥離を行うD1郭清とした。病理組織学的所見からもTubulo-Villous adenoma with severe atypiaで悪性病変の併存はなく、断端は陰性であり適切な

術式であったと考えられた。ただし、文献的に局所切除後の再発率は10~18%とされており<sup>2)</sup>今後も注意深い経過観察が必要と思われた。また、もし今回嵌頓症状がなければ脱肛として処理され発見が遅れた可能性もあった。本疾患の癌化率の高さを考えると、depletion syndrome症状を呈した時に加え“脱肛、直腸脱”を訴えた時には本疾患も念頭においた診断、治療が肝要と思われた。

#### 文 献

- 1) 芝原一繁, 宋本義則, 浅田康之ほか: 肛門外腫瘍脱出を繰り返した直腸 villous tumor の1例. 日臨外医会誌 57 : 3038—3041, 1996

- 2) 中山 肇, 菅谷芳樹, 須田浩介ほか: 大腸絨毛状腺腫の臨床病理学的検討. 成田赤十字病誌 1: 17—21, 2001
- 3) 小林利彦, 木村泰三, 吉田雅行ほか: 臨床的に低カリウム血症を呈した進行癌を伴う直腸 villous adenoma の2例. 日消外会誌 27: 927—931, 1994
- 4) 泉 俊昌, 石田 誠, 安川ひろ美ほか: 肛門から脱出, 嵌頓した直腸絨毛腺腫の1例. 日臨外医会誌 53: 1936—1940, 1992
- 5) 井上 仁, 上谷潤二郎, 片田雅孝ほか: 大量の粘液下痢のために著明な水電解質異常, 意識障害を惹き起こしたS状結腸絨毛腺腫の1例. 日本大腸肛門病会誌 42: 1220—1226, 1989
- 6) Roy AD, Ellis H: Potassium-secreting tumors of the large intestine. Lancet 11: 759—760, 1959
- 7) Shnitka TK, Friedman MHW, Kidd EG et al: Villous tumors of the rectum and colon characterized by severe fluid and electrolyte loss. Surg Gynecol Obstet 112: 609—621, 1961
- 8) Older J, Older P, Colker J et al: Secretory villous adenoma that cause depletion syndrome. Arch Intern Med 159: 879—880, 1999
- 9) McKittrick LS, Wheelock FC: Carcinoma of the colon. Charles C Thomas, Springfield Ill, 1954, p 61—63
- 10) 佐々木裕茂, 林 勝知, 鬼束惇義: 直腸, S状結腸を占居し electrolyte depletion syndrome を呈し広範囲にm癌を伴った絨毛腺腫の1例. 日消外会誌 32: 2684—2688, 1999
- 11) 山根成之, 澤田 隆, 清水 哲ほか: Electrolyte depletion syndrome を呈した直腸絨毛腫瘍の1例. 鳥取医誌 29: 81—85, 2001
- 12) 里見 昭, 森田孝夫, 長島麻里子ほか: 直腸絨毛腺腫の1例. 日臨外会誌 48: 396—400, 1987
- 13) 柳父宣治, 佐藤友信: Electrolyte depletion syndrome を伴い, 組織学的に高分化腺癌であった直腸 Villous tumor の1例. 日臨外会誌 60: 1350—1354, 1999
- 14) 野中道泰, 吉田晃治, 池尻公二ほか: 肛門よりの腫瘍脱出で発見された直腸巨大 villous tumor の1例. 日臨外会誌 65: 735—738, 2004
- 15) 小池盛雄: 大腸 villos tumor の問題点. 胃と腸 21: 1279—1283, 1986
- 16) 真船健一, 関根 毅, 須田雅夫ほか: 直腸 villous adenoma の1例—本邦報告例による文献的考察一. 日臨外医会誌 46: 634—639, 1985

### A Case of Tubulo-Villous Adenoma of the Rectum with Depletion Syndrome, Repeatedly Prolapsed and Incarcerated Through the Anus

Noriyuki Yasutomo, You Kurashima\* and Satoshi Kondo\*

Department of Surgery, Ishikari Hospital

Department of Surgical Oncology, Division of Cancer Medicine,

Hokkaido University Graduate School of Medicine\*

A case of tubulo-villous adenoma of the rectum is reported. The patient was a 76 year-old woman who complained of general fatigue and dehydration. Electrolyte disturbances and renal dysfunction (Na 125mEq/l, K 2.1mEq/l, Cl 88mg/l, BUN 57.9U/l, CREA 1.36mg/dl) were found, but they improved after admission. At the same time, an incarcerated tumor that had arisen from internal hemorrhoids that had repeatedly prolapsed over the past 2 years, was observed in the form of a fist-sized, soft, easy-bleeding velvet-like mass with a large quantity of mucus on its surface. A detailed examination revealed a villous tumor occupying 3/4 of the circumference of the lumen that was approximately 10cm in diameter and 8mm proximal to the dentate line. Super-low anterior resection was performed. The histopathological diagnosis was tubulovillous adenoma with no malignancy and a negative cut-end. There have been no recurrences of the dehydration or electrolyte disturbances.

**Key words** : villous adenoma, depletion syndrome, incarceration

[Jpn J Gastroenterol Surg 38 : 1400—1404, 2005]

**Reprint requests** : Noriyuki Yasutomo Department of Surgery, Ishikari Hospital  
3-3-13 Hanakawakita, Isikari, 061-3213 JAPAN

**Accepted** : February 23, 2005