

症例報告

直腸癌からの管腔内転移が考えられた転移性痔瘻癌の1例

徳島赤十字病院外科, 同 病理*

湯浅 康弘 沖津 宏 滝沢 宏光
石倉 久嗣 一森 敏弘 石川 正志
木村 秀 阪田 章聖 藤井 義幸*

症例は48歳の男性で、2004年4月下血および肛門部痛を主訴に近医を受診し、痔瘻、直腸癌疑いで当院に紹介となった。痔瘻は肛門左側に開口し、15mm大の顆粒状の硬い結節として触れた。なお、同部位からの生検では悪性所見はなかった。直腸診では肛門輪より4cmの直腸後壁を中心に硬い腫瘤を触れた。血液一般検査で特記事項は認めず、CEAは19ng/mlと高値を呈していた。精査の結果、痔瘻を伴う直腸Rb中分化型腺癌の診断のもとで、腹会陰陰式直腸切断術、D₃郭清を施行した。会陰操作では痔瘻を完全切除し、型のごとくS状結腸に人工肛門を造設した。術後会陰創の一部哆開を認めた以外経過は良好であった。病理組織診断で中分化型腺癌 a₂, n₁(+), ly₁, v₂で stage IIIa であった。痔瘻開口部からも同様の組織が確認でき、直腸癌からの管腔内転移と診断した。転移性痔瘻癌の報告はまれであり文献的考察を加え報告する。

はじめに

痔瘻に癌を合併することは、いわゆる原発性痔瘻癌として知られている。今回、我々は極めてまれな、直腸癌からの管腔内転移が考えられた転移性痔瘻癌の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：48歳，男性

主訴：下血および肛門部痛

既往歴，家族歴：特記事項なし。

現病歴：2004年4月，上記主訴で近医を受診し痔瘻および，直腸癌疑いで当院に紹介となった。なお，痔瘻の病悩期間は2年間であった。

入院時現症：身長155cm，体重56kg。貧血，黄疸はなく腹部は平坦，軟であった。痔瘻は肛門左側2時方向に開口し，15mm大の顆粒状の硬い結節として触れた(Fig. 1)。なお，1次孔は確認できなかったが，圧痛は肛門周囲に限局し低位筋間痔瘻であった。また，直腸診では肛門輪より4cmの直腸後壁を中心に可動性のない硬い腫瘤を触れ

Fig. 1 This photograph is of the anus of the patient. The tumor was palpable in a 1.5-cm diameter mass in the upper right anus.



た。

血液一般検査：炎症反応もなく特記事項はなかったが，CEAは19ng/mlと高値であった。

下部消化管内視鏡検査：直腸Rbに全周性の易出血性腫瘍を認め，生検で中分化型腺癌の診断を得た(Fig. 2)。なお，痔瘻開口部の結節からの生検では悪性所見はなかった。口側の検索は直腸狹窄のため施行できず，注腸造影X線検査は痔瘻に

<2006年1月25日受理>別刷請求先：湯浅 康弘
〒773-8502 小松島市中田町新開28-1 徳島赤十字
病院外科

Fig. 2 Endoscopic finding showed a circular mass at the rectum (Rb).

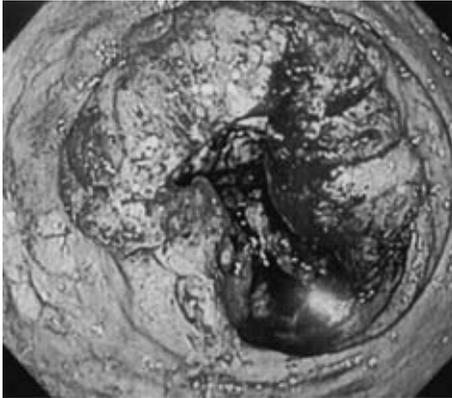


Fig. 3 CT scan shows rectal tumor with the thick wall. But the perianal fistula was not shown on another film.



よる著しい肛門部痛のため同意が得られなかった。

腹部骨盤部CT：直腸Rbの壁肥厚と周囲の脂肪濃度の上昇を認めた (Fig. 3)。また、肝転移、リンパ節転移、腹水の所見はなかった。

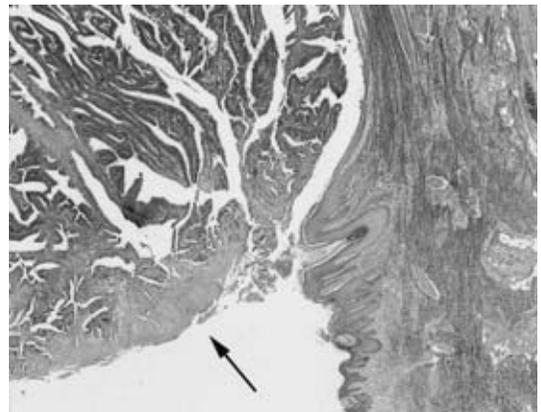
以上より、痔瘻を伴う直腸癌の診断で5月に手術を施行した。手術は側方郭清を伴う腹会陰式直腸切断術 (D₃) を行った。会陰操作では瘻孔を約1cmの切離線で完全切除し、型のごとくS状結腸に人工肛門を造設した。

切除標本の肉眼検査所見：直腸癌は60×50mm大の2型の全周性腫瘍でA₂, N₁(+), P₀, H₀であった (Fig. 4)。また、肉眼的に1次孔は確認できず痔

Fig. 4 Resected specimen shows the type 2 rectal cancer and the perianal tumor, which is pointed out.



Fig. 5 The microscopic picture of the rectal lesion was moderately differentiated adenocarcinoma (H.E. stain ×10).

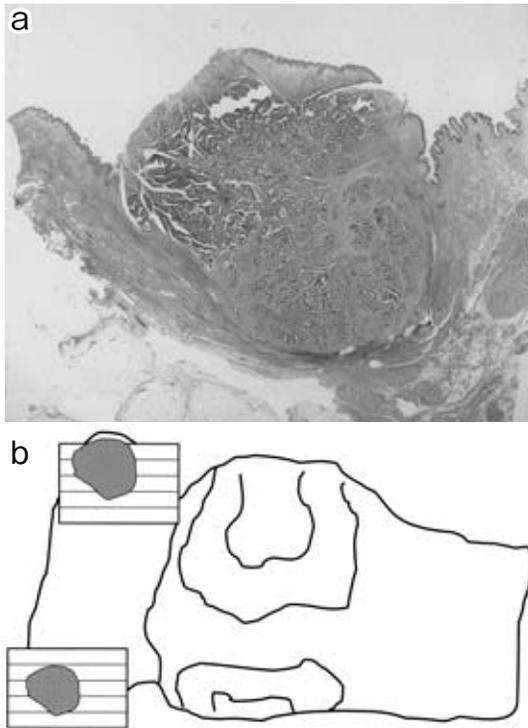


瘻と直腸癌の連続性は認めなかった。

病理組織学的検査所見：直腸癌は中分化型腺癌 a₂, ly₁, v₂, n₁ (+) (No251 : 4/6) で stage IIIa であった (Fig. 5)。一方、痔瘻開口部の結節からも直腸と全く同一の組織型を確認できた。腫瘍は限局し浸潤傾向は認めず、マッピングにおいても直腸癌との連続性のない孤発性の腫瘍であり直腸癌からの管腔内転移と診断した (Fig. 6a, b)。

経過：術后会陰創の一部哆開を認めた以外経過は良好で肛門部痛も消失し、術後第12病日軽快退院となった。Duke'B症例のため術後補助化学療

Fig. 6 The perianal lesion showed the same histopathological findings as the rectal lesion (a). Schema of localization of metastatic carcinoma, which showed that the metastatic tumor was non-invasive, limited and not continued to the rectal cancer (b).



法を考慮したが、同意が得られなかった。

考 察

日常よく遭遇する疾患である痔瘻は、anal crypt から進入した汚物が肛門腺に炎症を生じ肛門周囲の皮膚に開口する瘻孔を形成する疾患である。原発性痔瘻癌の報告は比較的多く、全痔瘻に対して0.1~0.3%の割合で癌が発生し多くは粘液癌であることが知られている¹⁾。診断基準としてRosser²⁾, McIntyre³⁾, Skir⁴⁾, 隅越ら¹⁾は臨床経過に重点をおいて、1) 痔瘻が少なくとも10年以上炎症を繰り返す、2) 痔瘻部分に増大してくる疼痛、硬結、3) mucin 様分泌物、4) 原発性の癌が直腸肛門のその他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、などの項目を挙げている。

一方、これら原発性痔瘻癌とは別に大腸癌から

の管腔内転移より発生したと推察される痔瘻癌が報告されている。医学中央雑誌で「転移性痔瘻癌」をキーワードとして1900年から2005年7月までに検索したところ、自験例を含め15例であり非常にまれである^{5)~18)} (Table 1)。いずれの報告例でも、その転移形式は口側に存在する大腸癌から脱落した癌細胞が痔瘻内にimplantationし転移巣が形成されたと考えられており、原発巣と痔瘻部の癌の組織型が同一であることを主な診断根拠とした同時性の転移性痔瘻癌であった。年齢は50~60代にピークがあり、女性は2例のみで男性に多く、組織型は高分化が7例、中分化型腺癌が8例であった。肛門から比較的近いS状結腸や直腸に原発巣を認め、多くはDukes'B以上の進行癌であった。本例も直腸癌と同一組織型の痔瘻癌であり、臨床経過からも原発性痔瘻癌よりも転移性痔瘻癌が考えられた。治療についてほとんどの症例で直腸切断術が施行されている。予後に関してはまだまだ症例が少ないが、6~60か月で5年生存例もみられる。肝転移やリンパ節再発の報告はあるものの、局所再発の報告はなく原発巣の進行度に左右されると考えられる。また、十分な切離範囲を確保できれば局所再発は防げるものと思われる。

一方、遊離癌細胞が着床・増殖することは、直腸前方切除後の吻合部再発の多くがimplantationであるというように現在では広く知られている。Umplebyら¹⁹⁾は大腸癌の遊離癌細胞にviabilityが高率に認められていることを報告しており、また一般的に広く行われているno touch isolationは、病巣から癌細胞が腸管内へ遊離することを避け、術後再発を減少させる方法として推奨され、最近でもその有用性を述べた報告が見られる²⁰⁾。Implantationの報告は痔瘻のみならず、内痔核切除後の手術瘢痕へのimplantation⁵⁾、あるいは自動吻合器挿入時の損傷、またはそのときの用手的肛門拡張術時の損傷部位へのimplantation²¹⁾の報告例が散見される。つまり、痔瘻のみならず、肛門に損傷がある場合、同部への癌のimplantationの可能性が出てくる。したがって、大腸癌に痔瘻を合併した場合、転移性痔瘻癌の発生を考慮した

Table 1 Case reports of the metastatic carcinoma of anal fistula

Case	Author (Year)	Sex/Age	Primary focus	Histological type	Morbidity term of anal fistula	Operation	Dukes' staging	Prognosis
1	Guiss ⁵⁾ (1952)	M/47	Sigma	mod	2 months	APR	A	14 months
2	Killingback ⁶⁾ (1965)	M/63	Sigma	well	8 years	APR	A	—
3	Rollinson ⁷⁾ (1984)	M/65	Rs	well	20 years	APR	—	10 months
4	Ueta ⁸⁾ (1991)	F/66	Sigma	well	44 years	APR	B	6 months
5	Thomas ⁹⁾ (1992)	M/68	Sigma	mod	1 year	APR	B	—
6	Fukumoto ¹⁰⁾ (1995)	M/67	Sigma	well	10 years	APR	—	12 months *
7	Nagata ¹¹⁾ (2001)	M/70	Sigma	well	20 years	ASR	B	—
8	Tokuhara ¹²⁾ (2001)	M/69	Sigma	mod	5 years	ASR	B	12 months
9	Yoshimura ¹³⁾ (2001)	M/59	Ra	mod	29 years	APR	C	43 months
10	Shinohara ¹⁴⁾ (2001)	M/36	Rb	mod	16 years	LAR	C	6 months *
11	Kouraklis ¹⁵⁾ (2002)	M/75	Sigma	mod	1 year	APR	B	—
12	Yagihashi ¹⁶⁾ (2002)	M/50	Sigma	well	—	TPE	C	44 months
13	Shimoyama ¹⁷⁾ (2003)	M/50	Rs	mod	5 years	APR	C	60 months
14	Kobashi ¹⁸⁾ (2005)	F/54	Ra	well	4 years	APR	C	12 months *
15	Our case	M/48	Rb	mod	2 years	APR	B	14 months

Sig : sigmoid colon, APR : abdominoperineal resection, ASR : abdominosacral resection, LAR : low anterior resection, TPE : total pelvic exenteration, * : relapse, — : unknown

経過観察が必要で、逆に痔瘻を診た際にはその分泌物の性状に注意するとともに組織診断や口側結腸の悪性所見の有無を確認すべきであると思われた。

本論文の要旨は第60回日本消化器外科学会定期学術総会(2005年7月,東京)にて発表した。

文 献

- 1) 隅越幸男, 岡田光生, 岩垂純一ほか: 痔瘻癌. 日本大腸肛門病学会誌 **34** : 467—472, 1981
- 2) Rosser C : The relation of fistula in ano to cancer of the anal canal. *Trans Am Proc Soc* **35** : 65—71, 1934
- 3) McIntyre JM : Carcinoma associated with fistula-in-ano. *Am J Surg* **84** : 610—613, 1952
- 4) Skir I : Mucinous carcinoma associated with fistulas of long-standing. *Am J Surg* **75** : 285—289, 1948
- 5) Guiss RL : The implantation of cancer cells within a fistula in ano. *Surgery* **36** : 136—139, 1954
- 6) Killingback M, Wilson E, Hughes ESR : Anal metastases from carcinoma of the rectum and colon. *Aust NZ J Surg* **34** : 178—187, 1965
- 7) Rollinson PD, Dundas SAC : Adenocarcinoma of sigmoid colon seeding into pre-existing fistula in ano. *Br J Surg* **71** : 664—665, 1984
- 8) 上田和光, 梅北信孝, 松峯敬夫: 転移性痔瘻癌の1例. 日臨外医会誌 **52** : 1323—1326, 1991
- 9) Thomas DJ, Thompson MR : Implantation meta-

stasis from adenocarcinoma of sigmoid colon into fistula in ano. *J R Soc Med* **85** : 361, 1992

- 10) 福本常雄, 森本重利, 露口 勝ほか: 胃癌, S字状結腸癌に合併した転移性痔瘻癌の1例. 徳島市民病医誌 **9** : 57—61, 1995
- 11) 長田俊一, 市川靖史, 山口茂樹ほか: 痔瘻根治術を契機として発見されたS状結腸癌痔瘻内転移の1例. 手術 **54** : 863—867, 2000
- 12) 徳原克治, 山中英治, 伊藤大輔ほか: 転移性痔瘻癌の1例. 日消外会誌 **34** : 1690—1694, 2001
- 13) 吉村 久, 家永徹也, 上田真三久ほか: 直腸癌からの管腔内転移により発症した痔瘻癌の1例. 日消外会誌 **34** : 1363—1366, 2001
- 14) Shinohara T, Hara H, Kato Y et al : Implantation of rectal cancer cells in a fistula in ano : report of a case. *Surg Today* **31** : 1094—1096, 2001
- 15) Kouraklis G, Glinavou A, Kouvaraki M et al : Anal lesion resulting from implantation of viable tumour cells in a pre-existing anal fistula. A case report. *Acta Chir Belg* **102** : 212—213, 2002
- 16) 八木橋信夫, 大澤忠治, 成田淳一ほか: 骨盤内臓全摘術を要した転移性痔瘻癌の1例. 日臨外会誌 **63** : 2224—2228, 2002
- 17) 下山雅朗, 須田武保, 飯合恒夫ほか: 直腸癌からの管腔内転移により発症した転移性痔瘻癌の1例. 日臨外会誌 **64** : 1434—1438, 2003
- 18) 小橋重親, 青柳武史, 渡辺正明ほか: 痔瘻癌と鑑別困難であった直腸癌痔瘻転移の1例. 日臨外会誌 **66** : 1409—1413, 2005
- 19) Umpleby HC, Formor B, Symes MO et al : Viability of exfoliated colorectal carcinoma cells. *Br J*

- Surg 71 : 659—663, 1984
- 20) Slanetz CA Jr : Effect of no touch isolation on survival and recurrence in curative resections for colorectal cancer. *Ann Surg Oncol* 5 : 390—398, 1998
- 21) Norgren J, Svensson JO : Anal implantation metastasis from carcinoma of the sigmoid colon and rectum—a risk when performing anterior resection with the EEA stapler. *Br J Surg* 72 : 602, 1985

A Case of Metastatic Carcinoma of Anal Fistula Caused by Implantation of Rectal Cancer

Yasuhiro Yuasa, Hiroshi Okitsu, Hiromitsu Takizawa,
Hisashi Ishikura, Toshihiro Ichimori, Masashi Ishikawa,
Suguru Kimura, Akihiro Sakata and Yoshiyuki Fujii*

Department of Surgery and Department of Pathology*, Tokushima Red Cross Hospital

A 48-year-old man with a 6-month history of anal fistula admitted for anal pain and a rectal tumor was found in examination of the perianal lesion to have a 1.5-cm-diameter mass in the upper right anus. Colonoscopy confirmed the presence of a circular mass at the rectum (Rb). Tumor biopsy showed moderately differentiated adenocarcinoma necessitating abdominoperineal resection (D3) with wide excision of the left perianal lesion. The perianal tumor showed the same histological appearance as the rectal cancer and no mucoid discharge common in carcinoma of anal gland origin was seen, so we assumed that free tumor cells from rectal cancer may have been implanted in the anal fistula.

Key words : metastatic carcinoma of anal fistula, implantation

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 39 : 1435—1439, 2006]

Reprint requests : Yasuhiro Yuasa Department of Surgery, Tokushima Red Cross Hospital
28-1 Shinbiraki, Chuden-cho, Komatsushima, 773-8502 JAPAN

Accepted : January 25, 2006