

症例報告

Sister Mary Joseph's Nodule を伴う S 状結腸癌の 1 例

広島市立安佐市民病院外科

坂部龍太郎 佐藤 幸雄 平林 直樹 多幾山 渉
小林 美恵 亀岡 稔 中島 亨 佐伯 修二
向田 秀則 山下 芳典

内臓悪性腫瘍からの臍転移は Sister Mary Joseph's Nodule (以下, SMJN) と呼ばれ, 予後不良の兆候として知られている. 大腸癌原発の SMJN は比較的まれで, 本邦では 37 例が報告されている. 我々は SMJN を伴う S 状結腸癌の 1 例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する. 症例は 54 歳の男性で, 腹痛と便秘を主訴に当院を受診した. 大腸内視鏡検査にて S 状結腸に全周性狭窄を伴う腫瘍を認め, 生検にて高分化腺癌と診断された. 身体検査所見では臍部に 2cm 大の発赤を伴う腫瘤を認め, 穿刺吸引細胞診にて腺癌の転移と診断された. 腹部 CT では臍部に造影効果のある腫瘤を認め, 骨盤底に腹水と腹膜播種を伴っていた. 開腹すると多発腹膜播種, 多発肝転移を認めた. 横行結腸双口式人工肛門造設を施行し, 術後全身化学療法を施行したが, 癌の急速な進行により術後 4 か月で死亡した. 大腸癌原発の SMJN では他臓器転移の状況を検討したうえでの治療選択が重要と考えられた.

はじめに

内臓悪性腫瘍からの臍転移は Sister Mary Joseph's Nodule (以下, SMJN) と呼ばれ予後不良の兆候として知られているが, 比較的まれな病態である¹⁾. 今回, 我々は急速に進行した SMJN を伴う S 状結腸癌の 1 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: 54 歳, 男性

主訴: 腹痛, 便秘

既往歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 半年前から腹痛と便秘を自覚し, 症状が増悪するため当院を受診した. 大腸内視鏡検査にて S 状結腸に全周性 2 型腫瘍を認めたため, 手術目的に入院となった.

入院時身体検査所見: 臍部に 2cm 大の発赤を伴う腫瘤を認めた (Fig. 1). 左鼠径部に 1.5cm 大の硬いリンパ節を触知した. 左下腹部に手拳大

の腫瘤を触知し, 腹部全体の膨満を認めたが, 圧痛は認めなかった.

血液検査所見: CEA 62.2ng/ml, CA19-9 2,561 U/ml と腫瘍マーカーの上昇を認めた.

大腸内視鏡検査所見: 肛門縁から約 20cm の S 状結腸に全周性 2 型腫瘍を認め, スコープの通過は不可能であった (Fig. 2). 生検にて Group 5, 高分化腺癌と診断された.

注腸造影 X 線検査所見: S 状結腸に完全閉塞を認め, 口側への造影剤流入は見られなかった. 直腸にも狭窄を認め Schnitzler 転移が疑われた (Fig. 3).

腹部造影 CT 所見: S 状結腸に全周性壁肥厚と周囲脂肪織の毛羽立ちを認めた. 臍部皮膚から腹膜までの全層に造影効果のある腫瘤を認めた. そのすぐ腹腔側に 5mm 大の結節を認めた (Fig. 4). 腹腔内脂肪織の濃度上昇と多数の小結節, 少量の腹水を認め, 腹膜播種が疑われた.

臍部腫瘤の穿刺吸引細胞診にて Class V, metastatic adenocarcinoma と診断された (Fig. 5).

根治的手術は不可能であるが, 原発巣による消

Fig. 1 Physical examination showed a hard red umbilical tumor 2 cm in diameter.

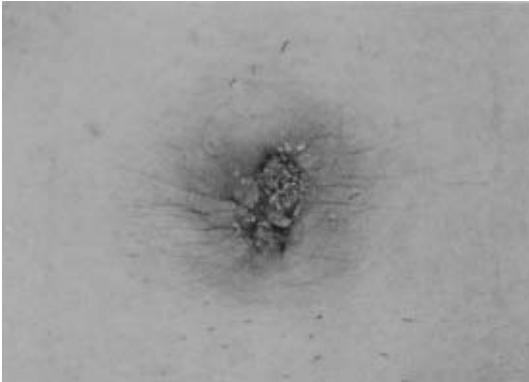


Fig. 2 Colonoscopy showed severe stenosis due to the tumor at sigmoid colon.

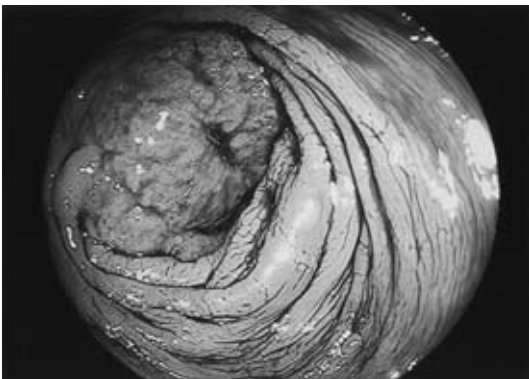


Fig. 3 Barium enema showed sigmoid colon obstruction and rectal stenosis.



Fig. 4 Abdominal computed tomography showed an enhanced mass at the umbilicus (arrow head), with small nodule beneath the mass (arrow).

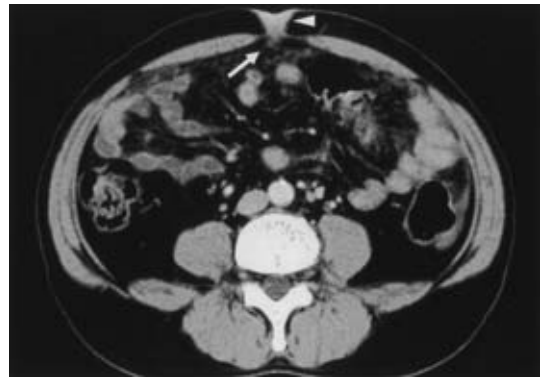
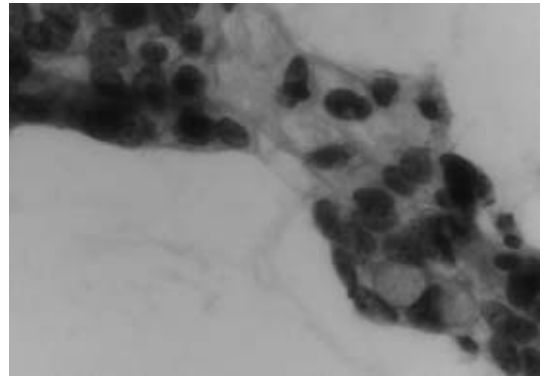


Fig. 5 Aspiration biopsy cytology of the umbilical tumor showed metastatic adenocarcinoma (Giemsa stain $\times 400$).



化管閉塞症状を回避するための人工肛門造設目的で開腹手術を施行した。

手術所見：腹腔内全体に5mmから2cm大の多発腹膜播種を認めた。臍部腹膜面にも播種結節を認め、臍腫瘍は腹膜播種からの浸潤による臍転移と考えられた。また、肝両葉に多発する転移巣を認めた。S状結腸癌SE, N₄(+), P₃, H₃, stageIVと診断した²⁾。原発巣切除や臍切除は行わず、横行結腸双口式人工肛門造設を行い手術終了した。

術後経過：術後早期から癌性腹膜炎の増悪による腹水増加を認めた。腹水穿刺排液、OK-432腹腔内注入を行いながら、全身化学療法としてFOL-

Table 1 Reported cases of Sister Mary Joseph's Nodule from colorectal cancer in Japan

Author	Year	Age	Sex	Primary site	Histology	Time	Other organ metastasis	Treatment	Prognosis
Matsubara ⁽⁶⁾	1972	62	F	Sigmoid	adeno	Synchronous	?	?	?
Moriyasu ⁽⁷⁾	1975	56	F	Cecum	pap	Synchronous	?	?	?
Nakayama ⁽⁸⁾	1976	58	F	Cecum	adeno	Synchronous	?	Exploratory laparotomy	?
Mor ⁽⁹⁾	1980	45	F	Cecum	pap	Synchronous	HEP, OVA	Chemotherapy	10 months dead
Oka ⁽¹⁰⁾	1981	58	M	Ascending	wel	Synchronous	HEP	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	6 months dead
Koizumi ⁽¹¹⁾	1985	56	F	Sigmoid	adeno	Synchronous	?	Resection of umbilicus	?
Sasaki ⁽¹²⁾	1987	64	M	Transverse	mod	Synchronous	?	?	2 weeks dead
Minagawa ⁽¹³⁾	1990	59	F	Cecum	?	Synchronous	none	Resection of primary tumor, chemotherapy, Hyperthermia therapy	17 months dead
Kanazawa ⁽¹⁴⁾	1992	23	F	Transverse	muc	Metachronous	PER, OVA	Resection of primary tumor, Chemotherapy	7 months dead
Okamoto ⁽¹⁵⁾	1992	74	F	Rectum	?	Synchronous	HEP	Colostomy, Resection of umbilicus	?
Kajimoto ⁽¹⁶⁾	1993	67	F	Transverse	muc	Synchronous	PER	Bypass operation, Resection of umbilicus	8 months dead
Ota ⁽¹⁷⁾	1993	45	M	Sigmoid	wel	Synchronous	PER	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	3 months alive
Mizushima ⁽¹⁸⁾	1995	62	F	Sigmoid	mod	Synchronous	PER, HEP	Chemotherapy	3 months dead
Meguro ⁽¹⁹⁾	1998	66	M	Sigmoid	wel	Synchronous	PER	Resection of umbilicus, Chemotherapy	3 months dead
Kinoshita ⁽²⁰⁾	2001	62	F	Ascending	mod	Synchronous	PER	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	10 months dead
Fujii ⁽²¹⁾	2002	65	F	Ascending	mod	Synchronous	PER, HEP, PUL	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	5 months dead
Okouchi ⁽²²⁾	2002	70	F	Transverse	wel	Metachronous	none	Resection of umbilicus	60 months dead
Orishige ⁽²³⁾	2002	54	F	Ascending	mod	Metachronous	OVA	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	22 months dead
Yasuda ⁽²⁴⁾	2003	43	F	Transverse	wel	Synchronous	PER, HEP, OVA	Resection of primary tumor and umbilicus	5 months dead
Yasuda ⁽²⁴⁾	2003	53	M	Sigmoid	wel	Synchronous	PER, HEP	Exploratory laparotomy, Chemotherapy	2 months alive
Yajima ⁽⁵⁾	2003	58	F	Sigmoid	wel	Synchronous	PER	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	11 months dead
Hisada ⁽²⁵⁾	2003	66	F	Cecum	?	Synchronous	none	Resection of primary tumor and umbilicus	?
Miyazawa ⁽²⁶⁾	2004	89	F	Cecum	mod	Synchronous	none	Resection of primary tumor and umbilicus	8 months alive
Kawai ⁽²⁷⁾	2004	64	F	Cecum	wel	Metachronous	PER	Resection of primary tumor and umbilicus	24 months alive
Ichinokawa ⁽²⁸⁾	2004	61	F	Descending	wel	Synchronous	HEP	Resection of primary tumor and umbilicus	?
Otani ⁽²⁹⁾	2004	60	F	Transverse	wel	Metachronous	?	Bypass operation, Chemotherapy	7 months dead
Tsuruta ⁽³⁰⁾	2004	70	M	Sigmoid	wel	Synchronous	none	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	6 months alive
Shiir ⁽³¹⁾	2004	77	M	Sigmoid	adeno	Synchronous	PER	Resection of primary tumor	?
Obuchi ⁽³²⁾	2004	75	F	Transverse	wel	Synchronous	PER	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	?
Obuchi ⁽³²⁾	2004	61	M	Transverse	mod	Synchronous	PER	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	?
Ito ⁽³³⁾	2004	75	F	Rectum	por	Synchronous	none	Resection of primary tumor and umbilicus	?
Sakamoto ⁽³⁴⁾	2004	76	M	Sigmoid	mod	Metachronous	none	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	8 months alive
Yoneyama ⁽³⁵⁾	2005	69	F	Rectum	adeno	Synchronous	none	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	?
Oshima ⁽³⁶⁾	2006	72	M	Rectum	mod	Synchronous	none	Resection of primary tumor and umbilicus	?
Takakado ⁽³⁷⁾	2006	65	F	Ascending	muc	Synchronous	?	Colostomy, Resection of umbilicus	?
Takakado ⁽³⁷⁾	2006	67	F	Cecum	mod	Synchronous	PER	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	?
Funaki ⁽³⁸⁾	2006	71	M	Descending	mod	Synchronous	none	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	?
Our case	2006	54	M	Sigmoid	wel	Synchronous	PER, HEP	Resection of primary tumor and umbilicus, Chemotherapy	4 months dead

adeno:adenocarcinoma, pap:papillary carcinoma, wel:well differentiated adenocarcinoma, mod:moderately differentiated adenocarcinoma, muc:mucinous adenocarcinoma, por : poorly differentiated adenocarcinoma, HEP : hepar, OVA : ovary, PER : peritoneum, PUL : pulmo

FOX6 (Oxaliplatin, Levofolinate calcium, 5-Fluorouracil)を2クール施行したが、肝転移増大、腹水増加、腫瘍マーカー上昇を認めた。FOLFIRI (Irinotecan, Levofolinate calcium, 5-Fluorouracil)に変更し1クール施行したが、癌性腹膜炎と肝転移の急速な悪化を認め、術後4か月で死亡した。

考 察

内臓悪性腫瘍からの臍転移はSMJNと呼ばれ、比較的まれな病態である。原発巣に先行して発見されることもあるが、発見時にはすでに進行している症例が多く、予後不良の兆候と考えられている¹⁾。SMJNの原発部位としてはMajmudarら³⁾の259例の報告によると胃癌29.7%、大腸癌15.4%、卵巣癌12.7%、膵癌8.9%とされ、Powellら⁴⁾の85例の報告によると胃癌20%、卵巣癌14.1%、大腸癌14.1%、膵癌10.6%とされている。本邦では矢嶋ら⁵⁾が2003年までの本邦報告113例を集計し胃癌37.2%、膵癌17.7%、卵巣癌15.1%、大腸癌11.5%、胆嚢癌6.2%と報告しており、原発部位として胃癌の頻度が高いことで内外の報告は一致している。

今回、我々が医学中央雑誌で「臍転移 (Sister Mary Joseph's Nodule)」、「大腸癌」をキーワードとして1983年から2006年の期間について検索し、その引用文献を渉猟したところ、大腸癌原発SMJNの本邦報告例は37例(会議録含む)^{5)~38)}であった。自験例を含めた38例について検討を行った(Table 1)。年齢は23~89歳(平均62.4歳)で性別は男性12例、女性26例(男女比1:2.2)と女性に多かった。大腸癌原発巣の部位はS状結腸が11例と最も多く、横行結腸8例、盲腸7例、上行結腸6例、直腸4例、下行結腸2例の順であった。組織学的には高分化腺癌と中分化腺癌が大部分を占めていた。SMJNの発見時期は同時性(SMJNが原発巣発見の契機になった症例を含む)が31例、異時性が7例であった。臍転移と同時期に認められた他の遠隔転移は腹膜播種が16例、肝転移が11例、卵巣転移が4例、肺転移が1例であった。他の遠隔転移を伴わない孤立性臍転移の症例は9例であった。治療としては、原発巣切除と臍切除

の両方が行われたのは17例で、それ以外の症例ではいずれか一方の切除やバイパス術、人工肛門造設術などの姑息的手術が行われていた。予後については、死亡に関する詳細な記載のある16例において、SMJNの診断から平均11.2か月であった。2年以上の長期生存例は、臍切除後に化学療法を施行し5年間生存した大河内ら²²⁾による報告と、免疫療法と化学療法により2年間生存中の河合²⁷⁾による報告の2例のみで、いずれも異時性の症例であった。肝転移や腹膜播種を伴うものは特に予後不良の傾向があった。原発巣の部位や組織型による予後の差は認められなかった。

臍臓は解剖学的に皮下脂肪と筋層が欠損しており、腹壁で最も脆弱な部位である¹⁹⁾。また、発生学的には腹腔内からの連絡網が豊富かつ複雑である¹⁶⁾¹⁹⁾。臍臓への転移経路としては、①血行性、②リンパ行性、③肝門索や尿管管遺残物を介する経路、④腹膜播種からの連続浸潤などが考えられている¹⁴⁾。自験例では腹腔内全体に腹膜播種が多発しており、臍の腹膜面にも播種巣を認めたことから、腹膜播種からの連続浸潤の可能性が高いと考えられた。

SMJNを伴う悪性腫瘍の予後は極めて不良とされ、平均9~11か月と報告されている⁴⁾⁵⁾³⁹⁾。今回、文献的に検討した大腸癌原発のSMJNにおいても過去の報告とほぼ同様の結果であった。しかし、近年の新規抗癌剤により大腸癌の予後は改善してきており、今後は長期生存例の報告も増加してくると思われる。

治療法に関して、Steckら³⁹⁾は転移が臍に局限している症例では原発巣と臍転移の切除により予後が改善すると報告している。また、矢嶋ら⁵⁾は外科的切除と化学療法をともに受けた症例では他の症例と比較して生存期間が長く、患者の全身状態を考慮したうえでの積極的な治療が延命効果を示すと報告している。一方で、すでに他臓器に転移を有し癌の末期状態で発見される症例も多く¹⁹⁾²¹⁾²⁴⁾、治療には限界があるのが現状である。自験例では消化管閉塞症状を認めていたため、人工肛門造設のための開腹手術は必要であったが、他臓器転移を伴っていたため原発巣切除や臍切除は施行しな

かった。孤立性臍転移症例では積極的な外科的切除と化学療法により予後が改善する可能性があると思われるが、他臓器転移を伴う場合には外科的切除の意義は低く、化学療法が第1選択になると考えられた。

論文中の病期分類は大腸癌取扱い規約第6版²⁾に準じて記載した。

なお、本論文の要旨は第68回日本臨床外科学会総会(2006年11月、広島)において発表した。

文 献

- Ishizawa T, Mitsunashi Y, Kondo S et al : Sister Mary Joseph's Nodule : a case report and review of the Japanese literature. *J Dermatol* **24** : 662—665, 1997
- 大腸癌研究会編：大腸癌取扱い規約。第6版。金原出版、東京、1998
- Majmudar B, Wiskind AK, Croft BN et al : The Sister (Mary) Joseph nodule : its significance in gynecology. *Gynecol Oncol* **40** : 152—159, 1991
- Powell FC, Cooper AJ, Massa MC et al : Sister Mary Joseph's nodule : a clinical and histologic study. *J Am Acad Dermatol* **10** : 610—615, 1984
- 矢嶋信久, 黒滝日出一, 西澤雄介ほか：Sister Mary Joseph's Nodule (転移性臍癌) の3自験例とわが国における報告例からの文献的考察。癌の臨 **49** : 711—716, 2003
- 松原為明：臍に生じた転移性臍癌の1例。日皮会誌 **82** : 336, 1972
- 森安昌治郎：転移癌の2例。西日皮 **37** : 152, 1975
- 中山担子：臍部転移癌。日皮会誌 **86** : 180, 1976
- 森 喜紀：転移性臍癌の1例。皮膚臨床 **22** : 1141—1146, 1980
- 岡 恵子, 宮崎和弘, 高屋通子ほか：転移性皮膚癌にみられた transepithelial elimination。日皮会誌 **91** : 1—6, 1981
- 小泉雄一郎：転移性臍腺癌の1例。日皮会誌 **95** : 1027, 1985
- 佐々木和夫：横行結腸癌の臍転移の1例。皮紀 **82** : 660, 1987
- 水川婦一郎, 澤田 敏, 神波雅之ほか：転移性臍腫瘍 (Sister Mary Joseph's nodule) のCT像。米子医誌 **41** : 257—263, 1990
- 金沢匡司, 野水 整, 菅野浩樹ほか：Sister Mary Joseph's nodule (SMJN) を呈した若年者横行結腸癌の1症例。癌の臨 **38** : 179—186, 1992
- 岡本欣也, 末永裕之, 平 昇ほか：Sister Mary Joseph's nodule (転移性臍腫瘍) の2例。日消誌 **89** : 1774, 1992
- 梶本宜史, 福田 保, 里見建裕ほか：臍腫瘍 (Sister Mary Joseph's nodule) で発見された大腸癌の1例。高知市民病紀 **17** : 49—52, 1993
- 太田敬三, 久米田茂喜, 岩浅武彦ほか：Sister Mary Joseph's nodule (転移性臍腫瘍) の2例。中部外科会総会号 **106**, 1993
- 水嶋淳一, 乃木田俊辰, 川島 真ほか：Sister Mary Joseph's nodule の1例。皮膚臨床 **37** : 1731—1733, 1995
- 目黒英二, 木村祐輔, 川村英伸ほか：S 状結腸癌の診断に先行した臍腫瘍 (Sister Mary Joseph's nodule) の1例。岩手医誌 **50** : 341—346, 1998
- 木下弘寿, 尾崎正彦, 有我隆光ほか：大腸癌臍転移の1例。日臨外会誌 **62** (増刊) : 733, 2001
- 藤井紀和, 段野喜一郎, 上原正巳：Sister Mary Joseph's nodule により発見された上行結腸癌の1例。臨皮 **56** : 651—653, 2002
- 大河内千代, 権田憲士, 稲見浩平ほか：横行結腸癌臍転移後5年生存した1例。東北医誌 **114** : 137, 2002
- 折茂達也, 白戸博志, 安達大史ほか：大腸癌臍転移の1例。北海道外科誌 **47** : 91, 2002
- 安田健司, 藤原英利, 松原光宏ほか：大腸癌による Sister Mary Joseph's nodule の2例。日消誌 **100** : 852—857, 2003
- 久田正昭, 奥濱幸博, 清水正幸ほか：臍転移を認めた大腸癌の1例。日臨外会誌 **64** (増刊) : 1046, 2003
- 宮澤正紹, 武藤 淳, 佐藤正幸ほか：臍部皮膚転移を認めた大腸癌の1例。日臨外会誌 **65** : 1000—1003, 2004
- 河合知則：臍腫瘍を来たした再発性大腸癌 (Sister Mary Joseph's Nodule, SMJN) に免疫療法を施行し長期に生存している1例。薬理と臨 **14** : 281—288, 2004
- 市之川一臣, 平 康二, 菱山豊平ほか：臍転移 (Sister Mary Joseph's Nodule) で発見された大腸癌の1例。北海道外科誌 **49** : 76—77, 2004
- 大谷 聡, 石樽 清, 大高克彦ほか：Sister Mary Joseph's nodule を呈した大腸癌の1例。日臨外会誌 **65** : 2020, 2004
- 鶴田雅士, 長谷川博俊, 西堀英樹ほか：Sister Mary Joseph's nodule の1例。日消外会誌 **37** : 1312, 2004
- 塩入誠信, 三枝奈芳紀, 清家和裕ほか：Sister Mary Joseph's Nodule (臍転移) 発症を契機に発見された S 状結腸癌の1例。日本大腸肛門病会誌 **57** : 839, 2004
- 小淵岳恒, 金禹チャン, 小西小百合ほか：臍転移 (Sister Mary Joseph's nodule) で発見された大腸癌の2例。日独医報 **49** : 531, 2004
- 伊藤 靖, 伊藤英人, 加賀谷正ほか：臍腫瘍 (Sister Mary Joseph's nodule) により発見された直腸癌の1例。日臨外会誌 **65** (増刊) : 510, 2004
- 坂本修一, 河井 健, 松田光弘ほか：S 状結腸癌術後臍転移 Sister Mary Joseph 結節の1例。日消誌 **101** (増刊) : 284, 2004
- 米山公康, 戸枝弘之, 今津嘉宏ほか：イレウスで

- 発症し臍転移を認めた直腸癌の1例. 日腹部救急医会誌 25 : 457, 2005
- 36) 大嶋英恵, 金子高英, 中野 創ほか: 直腸癌による Sister Joseph's nodule の1例. 日皮会誌 116 : 224, 2006
- 37) 高角康志, 安野正道, 村山忠雄ほか: 転移性臍腫瘍 (Sister Mary Joseph's nodule) を来たした大腸癌の2例. 日消外会誌 39 : 1269, 2006
- 38) 船木康二郎, 桐山正人, 佐々木省三ほか: Sister Mary Joseph's nodule を呈した大腸癌の1例. 日消外会誌 39 : 1269, 2006
- 39) Steck WD, Helwig EB : Tumors of umbilicus. Cancer 18 : 907—915, 1965

A Case of Sigmoid Colon Cancer with Sister Mary Joseph's Nodule

Ryutaro Sakabe, Yukio Sato, Naoki Hirabayashi, Wataru Takiyama,
Yoshie Kobayashi, Minoru Kameoka, Akira Nakashima, Shuji Saeki,
Hidenori Mukaida and Yoshinori Yamashita
Department of Surgery, Hiroshima City Asa Hospital

Metastatic umbilical tumor from internal malignancy, called Sister Mary Joseph's Nodule (SMJN), is known as a poor prognostic sign. SMJN from colorectal cancer is comparatively rare with only 37 cases reported, to our knowledge, in Japan. We report a case of sigmoid colon cancer with SMJN and review the clinical and pathological features of SMJN from colorectal cancer in the Japanese literature. A 54-year-old man admitted for abdominal pain and constipation was found in colonoscopy to have a sigmoid colon tumor with severe stenosis. Microscopic findings of the biopsy specimen showed well differentiated adenocarcinoma. Physical examination showed a hard red umbilical tumor 2cm in diameter, and aspiration biopsy cytology showed metastatic adenocarcinoma. Abdominal computed tomography showed an enhanced mass at the umbilicus, with ascites and peritoneal dissemination. Operative findings showed sigmoid colon cancer with panperitonitis carcinomatosa and multiple liver metastases. The man underwent colostomy and systemic chemotherapy, but died of cancer 4 months after surgery. It is important to choose treatments for SMJN from colorectal cancer in consideration of the other organ metastases.

Key words : Sister Mary Joseph's Nodule, metastatic umbilical tumor, colon cancer

[Jpn J Gastroenterol Surg 40 : 1966—1971, 2007]

Reprint requests : Ryutaro Sakabe Department of Surgery, Hiroshima City Asa Hospital
2-1-1 Kabeminami, Asakita-ku, Hiroshima, 731-0293 JAPAN

Accepted : May 30, 2007