

症例報告

## 小腸膀胱瘻にて発症した回腸原発粘液腺癌の1例

愛知県厚生連渥美病院外科

村岡 暁憲 鈴木 夏生 勅使河原修  
小松 義直 田上 鑛一郎

症例は72歳の女性で、下腹部不快感を主訴に当院内科を紹介受診した。検尿で潜血反応が陽性であったので泌尿器科に紹介され、膀胱鏡を施行したところ、腫瘍を認めた。瘻孔造影上、腫瘍を介して、小腸—膀胱瘻を形成していた。組織検査結果は腺癌であった。組織型より小腸癌、あるいは卵巣癌の小腸膀胱浸潤と診断し、手術を施行した。回腸終末より約1m口側の回腸が複雑に癒着し、腫瘍は一塊となって膀胱へ浸潤していた。子宮、両卵巣は正常であった。原発性小腸癌の膀胱浸潤と診断し、小腸部分切除、膀胱全摘術、回腸導管造設術を施行した。切除標本にて小腸膀胱瘻とともに小腸—小腸間にも腫瘍を介した瘻孔を認めた。病理組織学的検査結果は原発性小腸粘液腺癌であった。原発性小腸癌は消化管悪性腫瘍の中では発生頻度が低く、さらに本例のごとく膀胱小腸瘻にて発症したものは過去に報告を認めずまれであることから、若干の文献的考察を加え報告する。

### はじめに

小腸原発の悪性腫瘍は比較的多くあり、さらに膀胱に直接浸潤し瘻孔を呈して発症した例は、本邦においては過去に報告を認めない。今回、我々は膀胱炎を契機に診断された、膀胱に瘻孔を呈した原発性回腸粘液腺癌を経験したので報告する。

### 症 例

患者：72歳、女性

主訴：下腹部不快感

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：持続する下腹部不快感、軽度の排尿時痛にて近医を受診した後、精査加療の目的にて当院内科を紹介された。

入院時現症：身長145cm、体重45kg、体温、脈拍に異常を認めず。眼瞼結膜に軽度の貧血を認めた。変形性胸腰椎症にて、強く亀背を呈していた。軽度の痴呆も認めた。

初診時血液検査所見：軽度の貧血とCRP値の上昇、およびCA19-9値の著明なる上昇が認めら

れた。尿検査では潜血反応陽性(3+)であった(Table 1)。

膀胱腫瘍も疑われたことから検査目的にて泌尿器科を受診した。同日外来にて膀胱鏡検査を施行したところ、膀胱頂部に腫瘍を認めた(Fig. 1)。組織診を兼ね、経尿道的膀胱腫瘍摘出術(transurethral resection of a bladder tumor; 以下、TUR-Bt)が後日、入院にて施行された。

TUR-Bt：膀胱内には少量の浮遊物を認めた。膀胱頂部に腫瘍を認め切除を開始したが、筋層を越えていたために部分切除となった。後日あらためて膀胱全摘術の予定となったが、組織標本の病理組織学的検査結果は腺癌であり膀胱癌としてはまれであることから、膀胱外の腫瘍の直接浸潤とも考えられたため、全身検索を開始した。

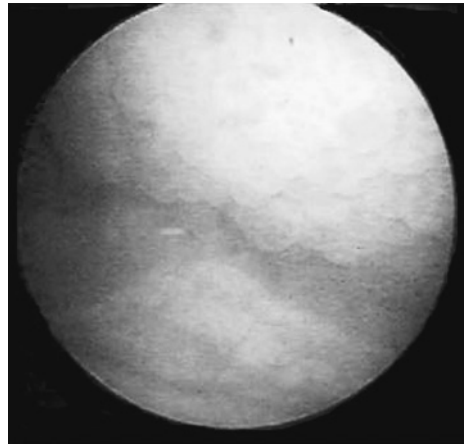
骨盤CT・MRI：膀胱頂部辺りの骨盤底に一塊となる腸管を認めたが、腫瘍を示唆する腸管壁の異常はあるものの、明らかな腫瘍影としては指摘できなかった。子宮、両卵巣は確認できなかった。

全身骨シンチグラム(99mTc)：異常な骨集積像は認めなかったものの、膀胱内に集積したラジオアイソトープの腸管内への流出が認められ、膀

**Table 1** Blood examination showed slight anemia and high CA19-9

Blood examination			
WBC	8,200 /mm <sup>3</sup>	TP	6.0 mg/dl
RBC	352 × 10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	T.B	0.4 mg/dl
Hb	9.6 g/dl	AST	14 IU/l
Ht	29.8 %	ALT	10 IU/l
Plt	31.7 × 10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	LDH	180 IU/l
		ALP	161 IU/l
Urinalysis			
PH	5.5	BUN	14 mg/dl
Protein	3 +	Cr	0.5 mg/dl
Sugar	(-)	Na	143 mEq/l
Occult Blood	3 +	K	3.3 mEq/l
Bacteria	3 +	Cl	103 mEq/l
		CRP	6.4 mg/dl
		CA19-9	244.2 IU/ml
		CA125	13.4 IU/ml
		CA72-4	7.0 IU/ml

**Fig. 1** Cystoscopy showed the tumor at the top of the bladder.



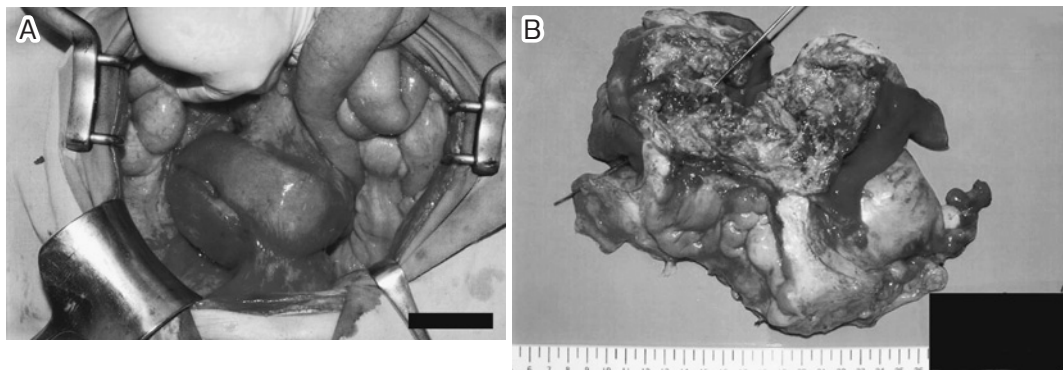
**Fig. 2** Systemic bone scintigram suggested communication between the bladder and the ileum (A). Cystography revealed a vesicointestinal fistula (B).



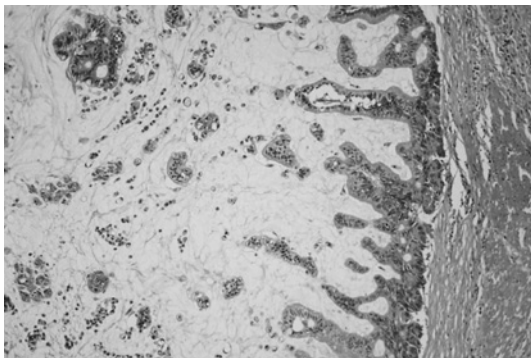
膀胱と腸管との間に瘻孔の存在が示唆された (Fig. 2A).

膀胱造影検査：膀胱から小腸へ連続する瘻孔を認めた (Fig. 2B).

**Fig. 3** Intraoperative findings(A). Normal uterus and right ovary were observed in the pelvis during operation, cancer of the small intestine was confirmed. The resected specimen (B) showed a vesicointestinal fistula, and yet another fistula was noted between intestines.



**Fig. 4** Histopathological findings revealed carcinomatous cells surrounded by considerable mucous originating in the small intestine.



以上より、小腸癌の膀胱浸潤、あるいは卵巣癌の小腸膀胱浸潤による小腸膀胱瘻と診断された。手術に際し泌尿器科より依頼あり、泌尿器科外科合同で手術を施行した。

手術所見：回盲部末端より約1m口側の小腸が約60cmにわたって複雑に幾重にも折れ曲がり、手拳大に一塊となって膀胱に広汎に浸潤、癒着していた(Fig. 3A)。その背側に正常な子宮と両卵巣を認めたことから、膀胱瘻を伴う小腸癌の膀胱浸潤と診断した。膀胱壁は広い範囲にわたって浮腫状を呈し浸潤の境界は不明瞭で、同部位の切除により膀胱容量が著明に低下し、機能障害を来す可能性が非常に高いとの泌尿器科医の判断により、

膀胱は全摘出した。一塊となっている回腸、および同部に流入する回腸動脈枝根部までの腸間膜の扇状切除を含む小腸部分切除術、膀胱全摘術および回腸導管造設術を施行した。

切除標本：腫瘍は病変部中央辺りの腸管に10cm超の長さにもわたって全周性に存在し、近傍回腸および膀胱へ複数か所にわたって直接浸潤を来していた。腫瘍部分の腸管内腔はわずかに保たれ、同部と膀胱との間に約2cm幅の瘻孔を認めた。さらに、それより口側と肛門側の回腸間にも、腫瘍を介した回腸—回腸の瘻孔を認めた(Fig. 3B)。

病理組織学的検査所見：多量の粘液産生を認める小腸由来の腺癌であり、si, ly1, v0, n0 (0/6)であった(Fig. 4)。

術後経過：術後経過は良好で、第35病日に退院した。CA19-9値は術後に一旦40まで低下。その後、UFT 450mg/日の内服を開始し、40~50台にて推移した。その後の定期的な画像診断においては、肝臓、肺への明らかな転移は確認されなかったが、術後1年4か月の外来受診の時に、ふらつきと嘔吐、急激な痴呆の進行が認められ、CA19-9値も96と上昇していた。頭部CTを施行した結果、7か所の脳転移が確認された(Fig. 5)。同時期に施行した胸腹部CTにおいては、やはり明らかな転移巣は認められなかった。同日より入院加療としたが、家族はこれ以上の抗癌剤や放射線治療を望まれず、脳浮腫の治療のみを施行した。脳転

Fig. 5 Contrast enhanced CT showed multiple brain metastasis.

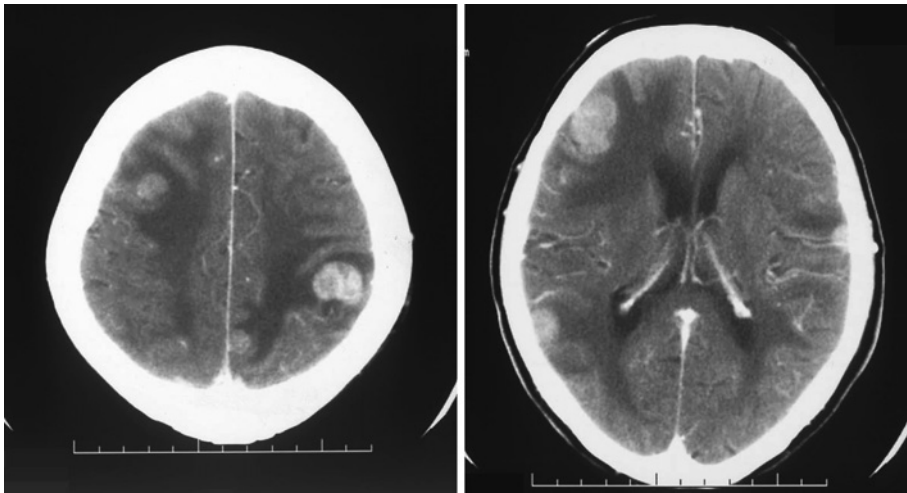


Table 2 Reported cases of mucinous adenocarcinoma of the small intestine in Japan

No.	Author	Year	Age/Gender	Location	Tumor size (cm)	Type	Stage	Prognosis
1	Konishi <sup>8)</sup>	1991	58/F	jejunum	3.5×3.5	torous	II	1Y alive
2	Inoue <sup>9)</sup>	1992	56/F	jejunum	5 (long diameter)	ulcerative	II	5Y6M alive
3	Nagata <sup>10)</sup>	1995	78/M	ileum	10.2×6.3	torous	I	2M alive
4	Kawai <sup>11)</sup>	1997	68/M	jejunum	9.0×4.0	ulcerative	II	1Y5M alive
5	Maeda <sup>12)</sup>	1997	73/F	jejunum	11.0×4.5	torous	IV	3M dead
6	Shibahara <sup>13)</sup>	2002	64/F	jejunum	10.0×8.5	ulcerative	IIIa	2M alive
7	Kitayama <sup>14)</sup>	2004	86/F	jejunum	2.5×4.0	ulcerative	II	1Y1M alive
8	Sato <sup>15)</sup>	2004	76/F	ileum	unknown	unknown	IIIb	unknown
9	Sakamoto <sup>16)</sup>	2004	64/M	jejunum	12.3×7.7×7	ulcerative	II	1Y alive
10	Ootsuki <sup>17)</sup>	2005	77/F	ileum	7×3	ulcerative	II	unknown
11	Kawashima <sup>18)</sup>	2005	44/F	ileum	10 (long diameter)	torous	II	11M alive
12	Our case		72/F	ileum	10 (long diameter)	ulcerative	II	1Y5M dead

M : male F : female

移はその後急激に大きさを増し、再入院45日後に死亡された。

### 考 察

原発性空腸および回腸癌は、全消化管悪性腫瘍の0.1~0.3%とされるまれな疾患である<sup>1)~7)</sup>。小腸癌は症状の出現が遅く簡便確実な検診法もないために進行状態での発見が多く、術前に小腸癌との確定診断がなされることすらいまだ少ない<sup>2)3)</sup>。肉眼型により輪状狭窄型、腫瘤型、潰瘍型に分類され、なかでもその中で輪状狭窄型が最も多い<sup>3)</sup>。病理組織学的には高分化および中分化型腺癌が6~

8割を占め、粘液癌は6%程度とされ、まれである。我々が医学中央雑誌刊行会にて1984~2006年より「小腸粘液癌」をキーワードとして検索した範囲内において、わずか11例の報告を認めるにすぎなかった<sup>8)~18)</sup>(Table 2)。報告された粘液癌症例において、その臨床症状や予後に他組織型と比べ特徴的な所見は認めないものの、その肉眼型において他では頻度の低い潰瘍型を呈すものが多い傾向にあった。本例も潰瘍型を呈し、さらに管腔外方向への発育が強く認められた。

本例は、小腸癌が膀胱に直接浸潤し、瘻孔を形

成して発症するというまれな経過を辿った。小腸癌の臨床症状としては腸閉塞症状、消化管出血、腫瘍触知が3主徴とされ、まれに穿孔例も報告されるが、膀胱炎にての発症例は、我々が医学中央雑誌およびPubMedにて検索しえた範囲内においては過去に1例の報告があるのみであり<sup>19)</sup>、本邦においては報告例を認めなかった。また、小腸癌が膀胱へ直接浸潤を来したとする報告もわずか1例を確認するのみであった<sup>20)</sup>。多くの輪状狭窄型や腫瘍型を呈する小腸癌は内腔方向へ突出するため閉塞症状を呈しやすく、また小腸は解剖学的に腹腔内における自由度が高いことから、他臓器に浸潤を来す前に他の臨床症状が出現し処置されるためであろうと推測されるが、本例のごとき潰瘍型は閉塞症状が緩慢に進行し臨床症状に乏しい。さらに、本例は腫瘍を介した腸管同士のバイパスも別に認められたため通過障害が出にくく、その潰瘍底が膀胱内へ穿破するまで進行した可能性がある。また、本例は強い亀背体形であったが、これは腹腔を上下方向に狭めることとなり、さらに仰臥位にても常に上半身を軽度挙上しているような状態であったことも、腫瘍の骨盤底への落ち込み、および腫瘍と膀胱との接触、浸潤を手助けしたものと考えられた。

また、本例はCA19-9値が高値を示していた。小腸癌における腫瘍マーカーの検討はあまりなされてはいないが、池永ら<sup>7)</sup>の報告によると、CA19-9の陽性率は18%程度と決して高くない。高値例は治療効果判定や再発の指標として有用である位だが、同マーカーが高値の症例は、腹膜播種や他臓器浸潤のある進行例が多かったと報告されており、今後の症例の蓄積、検討が待たれるところである。

小腸癌の治癒切除率は60~70%、5年生存率は26%程度とされる<sup>5)</sup>。治癒切除群と非治癒切除群との間には生存率に差があるとされ、可能なかぎり手術治療が第1選択である。術後補助療法に関しては推奨される使用薬剤はないが、5FUやMMCなどを用いた胃癌あるいは大腸癌に準じたレジメンにて奏効した報告が散見される<sup>21)~25)</sup>。我々は進行大腸癌に準じ5FU系の薬剤を投与し

ていたが、術後1年4か月にて多発脳転移を来した。画像診断上、明らかな肝臓、肺への転移は確認できず、その経路に関しては断定できないが、術後もCA19-9値は常に50から60の間にて推移していたため、微細な転移巣は手術時にすでに認められていたものと推測される。ちなみに、剖検は家族の同意が得られず、施行できなかった。

CA19-9値が高値を呈し、膀胱に直接浸潤、穿破し膀胱炎を来した結果発症した、原発性回腸癌の1例を経験した。小腸癌はまれであり、早期に診断しうる簡便な検査法もまだ一般化したものはないため、診断も遅れがちになることが多いが、現在でも切除が第1の治療であることから、小腸内視鏡などの早期発見しうる検査法の普及が待たれるところである。

## 文 献

- 1) 倉金丘一：本邦における原発性空・回腸癌の臨床統計的考察。最新医 34：1053—1058, 1979
- 2) 八尾恒良, 八尾健史, 真武弘明ほか：小腸腫瘍—最近5年間(1995—1999)の本邦報告例の集計—。胃と腸 36：871—881, 2001
- 3) 棟方昭博, 福田真作：小腸腫瘍—(3) 腺癌。臨消内科 10：259—265, 1995
- 4) 森山重治, 木下尚弘, 宇高徹総ほか：原発性小腸癌の1例と129例の臨床病理学的検討。外科 55：212—216, 1993
- 5) 飯合恒夫, 谷 達夫, 須田武保ほか：小腸癌。外科 63：1458—1461, 2001
- 6) Dabaja BS, Suki D, Pro B et al：Adenocarcinoma of the small bowel：presentation, prognostic factors, and outcome of 217 patients. Cancer 101：518—526, 2004
- 7) 池永雅一, 吉川宣輝, 西庄 勇ほか：CA19-9高値の小腸癌の1例とわが国集計。癌の臨 43：957—961, 1997
- 8) 小西隆蔵, 林堂元紀, 河野暢之ほか：原発性空腸粘液癌の1例。Gastroenterol Endosc 33：103—107, 1991
- 9) 井上哲也, 友田博次, 松隈哲人ほか：原発性小腸癌の2例。外科 54：891—894, 1992
- 10) 長田真二, 種村廣巳, 大下裕夫：大腸癌術後8年目にイレウスにて発症した小腸癌の1手術例。癌の臨 41：1113—1117, 1995
- 11) 河合正巳, 松崎安孝, 弥政晋輔ほか：結腸粘液癌を合併し、胃壁内への転移を来した原発性小腸癌の1例。日消外会誌 30：1957—1961, 1997
- 12) 前田壽哉, 岩崎光彦, 濱谷昌弘ほか：血清CEA, CA19-9が高値を呈した原発性小腸 mucinous adenocarcinoma の1例。日外会誌 98：972—

- 975, 1997
- 13) 芝原一繁, 田村昌也, 舟木芳則: 血清 CEA が高値を呈した原発性小腸粘液癌の1例. 消外 25: 255—260, 2002
  - 14) 北山大佑, 青木靖雄, 森嶋友一ほか: 原発性回腸粘液癌の1切除例. 日臨外会誌 65: 2138—2141, 2004
  - 15) 佐藤徹也, 辻 昌孝, 藤野幸夫ほか: 原発性回腸粘液癌の一例. 日消外会誌 37: 1248, 2004
  - 16) 坂本茂夫, 大野健次, 斉藤典才ほか: 管腔外発育潰瘍型原発性空腸粘液癌の1切除例. 日消内視鏡会誌 46: 2304—2309, 2004
  - 17) 大月和宣, 剣持 敬, 西郷健一ほか: CEA 高値を契機に発見された小腸粘液腺癌の1例. 日臨外会誌 66: 543, 2005
  - 18) 河島秀昭, 石後岡正弘, 櫻山基矢ほか: 大腸全摘後の回腸嚢に小腸癌が発生したクローン病の1例. 日消外会誌 38: 549—554, 2005
  - 19) Stephen F, Samuel BG, Brian GB: Mucusuria-An unusual manifestation of ileal adenocarcinoma: a case report and review of the literature. Int Surg 90: 85—87, 2005
  - 20) 高梨節二, 原 隆志, 吉田 信: 小腸重複癌より発生し膀胱浸潤した腺癌の1例. 日臨外会誌 64: 984, 2003
  - 21) 吉田直優, 角 泰廣, 村瀬勝俊ほか: 集学的治療が奏効した多発転移を来した回腸癌の1例. 日消外会誌 38: 353—358, 2005
  - 22) 原 譲次, 黒住和史, 小関万里: 原発性小腸癌の一例. 日臨外会誌 65: 692, 2004
  - 23) 神崎憲雄, 星野 豊, 寺島雅典: 化学療法が奏効した, 若年者原発性小腸癌の1例. 日臨外会誌 64: 983, 2003
  - 24) Gibson MK, Holcroft CA, Kvols LK et al: Phase II study of 5-fluorouracil, doxorubicin, and mitomycin C for metastatic small bowel adenocarcinoma. Oncologist 10: 132—137, 2005
  - 25) Delaunoy T, Neczyporenko F, Limburg PJ et al: Small bowel adenocarcinoma: a rare but aggressive disease. Clin Colorectal Cancer 4: 241—248, 2004

### A Case Report of the Mucinous Adenocarcinoma of the Small Intestine that has a Vesicointestinal Fistula

Akinori Muraoka, Natsuo Suzuki, Osamu Teshigawara,  
Yoshinao Komatsu and Kouichirou Tagami  
Department of Surgery, Atsumi Hospital

A 72-year-old woman referred for low abdominal discomfort was found in urinalysis to have hematuria. Cystoscopy by urologist found a tumor at the top of the bladder, necessitating transurethral resection of the bladder tumor. The tumor had invaded the serosa and resection was incomplete. Microscopic findings of the specimen indicated adenocarcinoma, suggesting that the tumor had originated in either the right ovary or small intestine rather than the bladder, so another examination was made. Computed tomography and magnetic resonance imaging showed a tumor in the pelvic space outside the bladder. Blood tests showed high CA 19-9. Scintigraphy showed radioisotope leakage of the bladder into the small intestine, and cystography revealed a vesicointestinal fistula. Small bowel cancer or ovarian cancer invasion of the small intestine and bladder was suspected, necessitating surgery. Intraoperative findings showed small bowel cancer invading the bladder directly with vesicointestinal fistula, requiring partial ileotectomy and total cystectomy. The histopathological finding was mucinous adenocarcinoma. To our knowledge, there have been few reports of small intestinal carcinoma such as this with vesicointestinal fistula.

**Key words** : mucinous adenocarcinoma of the small intestine, vesicointestinal fistula, a high CA19-9 level

[Jpn J Gastroenterol Surg 41 : 1631—1636, 2008]

**Reprint requests** : Akinori Muraoka Department of Surgery, Atsumi Hospital  
1-1 Akaishi, Kanbe-cho, Tahara, 441-3415 JAPAN

**Accepted** : January 30, 2008