

---



---

 症 例 報 告
 

---



---

## MRI 画像で経過観察し、特徴的な顆粒集合様所見を示した 痔瘻癌の 1 例

松澤 岳晃・小林 孝・畠山 悟  
新潟臨港病院外科

加川隆三郎  
洛和会音羽病院大腸肛門科

橋立 英樹  
新潟市民病院病理診断科

### MRI Symptomatic Features in a Case of Mucinous Adenocarcinoma Associated with Anal Fistula

Takeaki MATSUZAWA, Takashi KOBAYASHI and Satoru HATAKEYAMA

*Department of Surgery, Niigata Rinko Hospital*

Ryuzaburou KAGAWA

*Department of Coloproctology, Rakuwakai - Otowa Hospital*

Hideki HASHIDATE

*Department of Pathology, Niigata City General Hospital*

#### 要 旨

痔瘻癌は深部痔瘻が長期間存在した場合に発生する可能性があるが、骨盤内に存在するためその診断は困難である。今回、深部痔瘻を MRI にて経過観察し、その内部に痔瘻癌が発生したことを診断しえた。患者は 66 歳、男性、約 20 年前に痔瘻手術の既往がある。血便、排便困難、腹部膨満感を主訴に当院を受診した。右坐骨直腸窩膿瘍および骨盤直腸窩膿瘍と診断しドレナージ手術を施行した。症状は軽快し退院したが、退院時 MRI で骨盤直腸窩膿瘍が残存したため

Reprint requests to: Takeaki MATSUZAWA  
Department of Digestive Tract and  
General Surgery Saitama Medical Center  
Saitama Medical University  
1981 Kamoda, Kawagoe 350 - 8550 Japan

別刷請求先：〒350 - 8550 埼玉県川越市鴨田 1981  
埼玉医科大学総合医療センター消化器・一般外科  
松澤 岳晃

根治手術を勧めるも本人が拒否した。2年4ヶ月後のMRI T2強調画像で6時に原発巣, 7時方向で肛門括約筋を穿破し坐骨直腸窩に出て, 口側9時方向に瘻管・膿瘍を形成する痔瘻を認めた。また, 瘻管は原発巣から6時方向へ肛門括約筋内を上行し, 骨盤直腸窩に高信号で分葉状の顆粒集合様領域を認めた。MRI画像で顆粒集合様領域を認め痔瘻癌と診断した。生検にて粘液産生性の痔瘻癌と確定診断, 根治手術を施行した。

キーワード: MRI, 粘液癌, 深部痔瘻

## 緒言

長期間存在した深部痔瘻は炎症を繰り返し癌の発生をみることがある。しかしながら, 痔瘻癌は複雑な走行をする深部痔瘻に合併するため, 術前に痔瘻癌を診断することは非常に困難である。今回, MRIを用いて経過観察した深部痔瘻患者で, 顆粒集合様を示す特徴的画像から痔瘻癌と診断し2回の生検後, 根治手術を施行した症例を経験したので報告する。

## 症例

患者: 66歳, 男性。

主訴: 血便, 排便困難, 腹部膨満感。

既往歴: 約20年前に痔瘻手術の既往があるが詳細は不明。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 2006年1月, 血便, 排便困難, 腹部膨満感を主訴に当科を受診した。受診時, 体温37.8度, 白血球 $9,300/\mu\text{l}$ , CRP $10.0\text{mg/dl}$ と炎症所見を認め, 腹部骨盤造影CTで右坐骨直腸窩膿瘍および骨盤直腸窩膿瘍と診断し緊急入院した。腫瘍マーカーは, CEA $3.1\text{ng/ml}$ , CA19-9 $21.8\text{U/ml}$ と正常範囲内であった。入院後, 低位腰椎麻酔下に緊急ドレナージ手術を施行した。肛門周囲は視触診上異常所見を認めなかった。肛門鏡検査で6時方向の歯状線を中心に縦走する線状潰瘍の癒痕を認めた。3時から9時方向の直腸壁は硬化し, 壁外性に圧迫されていた。5時および7時方向の肛門皮膚を切開し, 膿瘍を可及的にドレナージした。術後21病日のMRIで骨盤直腸窩膿瘍の残存

を確認し, 深部痔瘻の根治手術を勧めたが, 患者が拒否し施行せず, 症状が軽快したため退院した。その後, 外来で経過観察をしていたが, 2008年3月, 再び肛門痛, 排便困難が出現した。同年5月, MRIで骨盤直腸窩膿瘍腔の拡大を認めたため, 再度痔瘻根治手術を勧めたが手術を拒否した。同年10月のMRIで骨盤直腸窩膿瘍内に粘液産生性の痔瘻癌の存在を疑われたため, 同年12月確定診断目的に入院した。



図1 初診時腹部骨盤造影CT画像所見  
骨盤直腸窩膿瘍(矢印)および坐骨直腸窩膿瘍(矢頭)を認める。

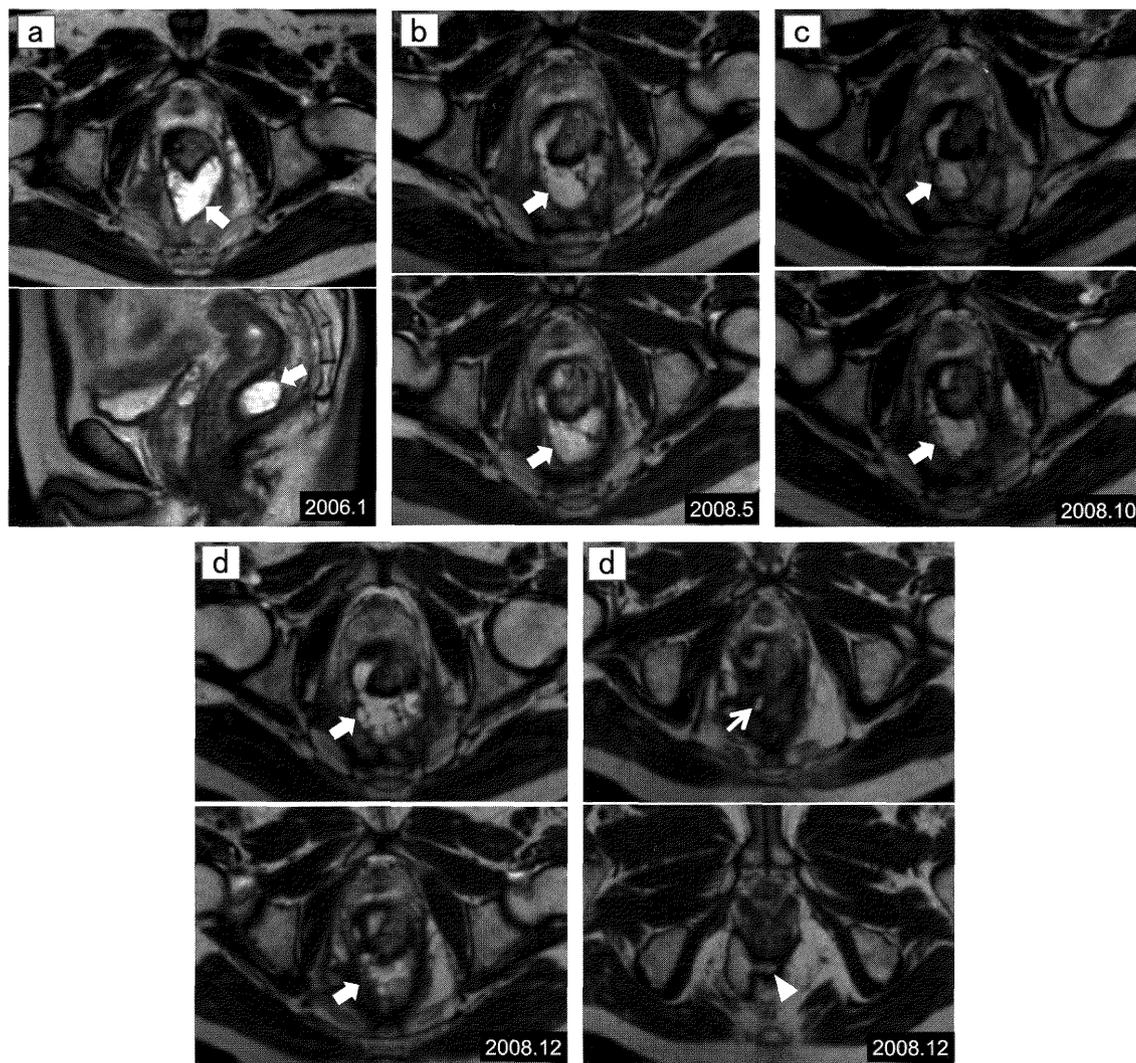


図 2 経時的腹部骨盤 MRI T2 強調画像所見

- a：骨盤直腸窩膿瘍の残存を認める（2006 年 1 月）。
- b：骨盤直腸窩膿瘍腔の拡大を認める（2008 年 5 月）。
- c：骨盤直腸窩膿瘍内に隔壁様構造が多数認められる（2008 年 10 月）。
- d：分葉状の顆粒集合様所見部（矢印）、原発巣（矢頭）、瘻管（細矢印）（2008 年 12 月）。

入院時現症：肛門指診で後壁を主体とした壁の硬化と壁外性圧迫による狭窄所見を認めた。

入院時血液検査所見：血算生化学検査に異常を認めなかった。腫瘍マーカーは、CEA 3.6ng/ml、CA19-9 84.0U/ml と CA19-9 の上昇を認めた。

初診時腹部骨盤造影 CT 所見（2006 年 1 月）：右坐骨直腸窩およびその口側 3 時から 9 時方向の直腸背側に、高濃度領域に囲まれた低濃度領域を認め、坐骨直腸窩膿瘍、骨盤直腸窩膿瘍と診断した。また、同部位より口側の直腸内腔の拡張を認めた（図 1）。

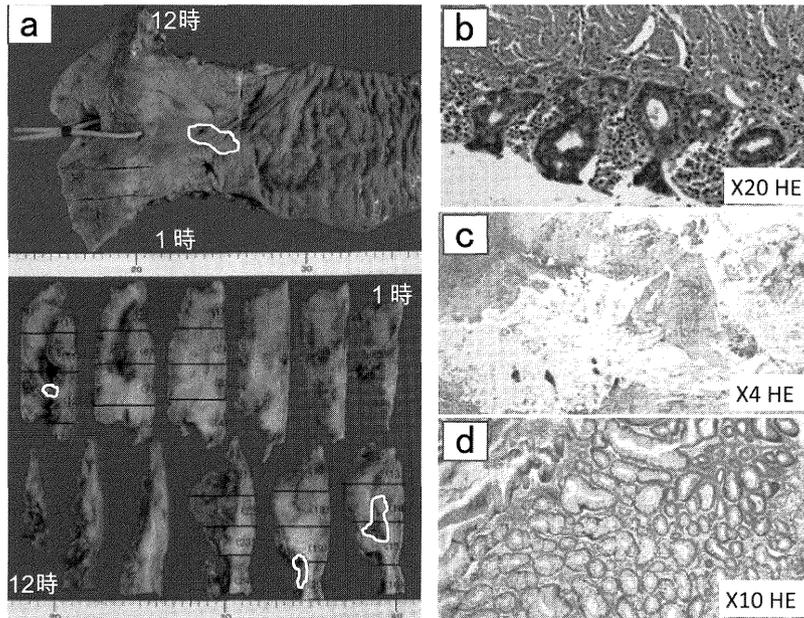


図3 病理組織学的所見

a : 粘膜面に腫瘍性病変は認めない (太線は粘液湖および高分化腺癌存在範囲).  
 b : 癌部. c : 粘液湖部. d : 痔瘻部.

**経時的腹部骨盤 MRI T2 強調画像所見 [2006年1月, 2008年5月, 同年10月, 同年12月 (図2a, b, c, d)] :** 2006年1月, 膿瘍内容はやや不均一ではあるが, いまだはっきりとした顆粒集合様所見は認められず, 不良肉芽と考えた. 2008年5月, 骨盤直腸窩膿瘍腔は増大し, その中に隔壁様構造が認められるようになった. 2008年10月には隔壁様構造が増加し分葉状の顆粒集合様所見となっており, その特徴的所見から粘液産生性の痔瘻癌と診断した. この所見は同年12月にはさらに著明となった. MRI 所見では原発巣を6時に認め, 7時方向で肛門括約筋を穿破し坐骨直腸窩に出て, 口側9時方向に瘻管・膿瘍を形成していた. また瘻管は原発口より6時方向へ肛門括約筋内を上行し, 肛門拳筋上の4時から12時方向の高信号の顆粒集合様所見部位と交通していた. 顆粒集合様所見部位を痔瘻癌と診断した.

同年12月に腰椎麻酔下で, 6時の原発口に対するシートン手術と, 生検術を施行した. 肛門周囲

に2次口は認めなかった. 7時方向の肛門周囲皮膚を約2.5cm切開した. 切開を坐骨直腸窩方向に進めると少量の膿瘍を認めた. 同部位で標本を摘出後, 原発口から切開創にゴム紐を留置した. 病理学的検索では悪性所見は認めなかった. 生検術後に施行したMRI検査で肛門拳筋上腔の病変部が生検されていないことを確認したため, 再度肛門拳筋上腔の生検を施行した. 前回の切開創からさらに奥へ切開を進め, 肛門拳筋上腔を開放した際に粘液の流出を認めた. 同部の生検で粘液産生性の痔瘻癌と診断され, 2009年1月, 腹会陰式直腸切断術を施行した.

**手術所見 :** 腹膜反転部以下の直腸固有間膜は痔瘻による炎症で硬化していた. 硬化の強い1時方向で膿瘍内の粘液湖が露出したが, 肉眼的に腫瘍を完全切除した.

**病理組織学的所見 :** 粘膜面に腫瘍の露出は認めなかった. 直腸固有間膜は固く一塊となっており, 痔瘻および粘液湖は4時から9時方向の上部直腸

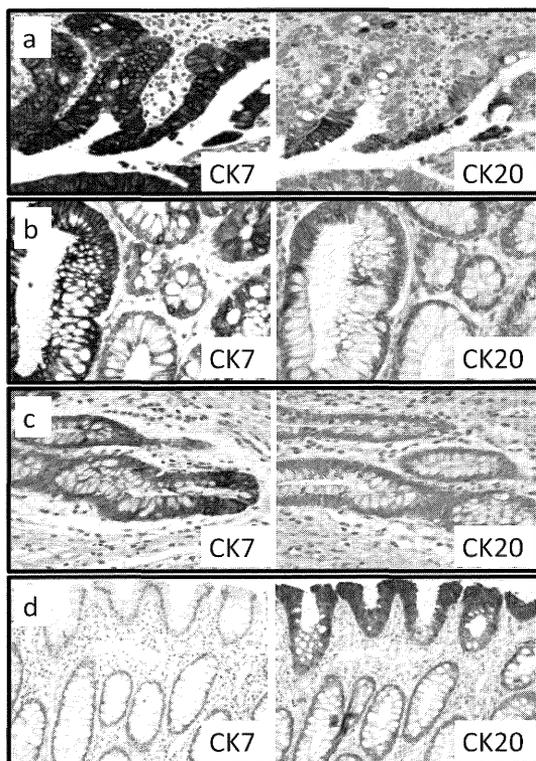


図4 免疫組織学的所見

- a : 癌部. CK7 陽性, CK20 一部陽性.  
 b : 痔瘻部. CK7 陽性, CK20 一部陽性.  
 c : 肛門腺部. CK7 陽性, CK20 一部陽性.  
 d : 正常直腸粘膜. CK7 陰性, CK20 陽性.

固有間膜内に存在した。6時から8時方向の固有筋層からそれ以深の組織内に4.0×2.0cmの領域で粘液湖および高分化腺癌を認めた(図3)。

**免疫組織化学的所見：**腫瘍細胞、痔瘻上皮、肛門腺ともCK7陽性、CK20一部陽性であり、直腸上皮はCK7陰性、CK20陽性であったため、癌は肛門腺由来の可能性があると診断した(図4)。

**術後経過：**術後創感染を認めたが、第45病日に退院した。2012年8月現在再発を認めていない。

## 考 察

痔瘻癌の診断は、一般にRosser<sup>1)</sup>、Skir<sup>2)</sup>らの示した臨床経過を重視した定義により行われる。本邦では隅越ら<sup>3)</sup>が痔瘻癌の診断基準を以下の5項目にまとめている。すなわち、①少なくとも10年以上にわたり痔瘻が存在し、炎症を繰り返している。②痔瘻の部分に疼痛や硬結が生じてくる。③ムチン様の分泌物をみとめる。④他の上位消化管に癌を認めない。⑤痔瘻の開口部が肛門管または肛門陰窩に存在する、というものである。本症例では、初診時以前に軽度の排便困難感を有する以外に明らかな痔瘻の症状は認めなかった。しかしながら、初診時には坐骨直腸窩膿瘍・骨盤直腸窩膿瘍を認めた。坐骨直腸窩膿瘍をドレナージ後、骨盤直腸窩膿瘍が残存しているにもかかわらず主訴が軽快したこと、詳細は不明であるが約20年前に痔瘻手術を受けていることから20年間以上骨盤内に痔瘻が存在し続けていた可能性が示唆された。これより①を満たすと判断した。②は主訴であり、③ムチン様分泌物は生検時に認めた。④上部腸管の悪性腫瘍の有無に関しては、今回の経過中に大腸内視鏡検査を施行しているが大腸癌は認められず、瘻管に大腸癌細胞がimplantationした可能性はなかった。また残る⑤は初診時6時方向の歯状線を中心に縦走する線状潰瘍の癩痕を認めたこと、切除標本のCK7、CK20免疫染色で癌が他の直腸上皮とは異なり、肛門腺と同様の染色パターンを示したため、痔瘻の開口部がかつて肛門陰窩に存在したことを示していると考えた<sup>4)5)</sup>。以上、5項目すべてを満たすため、本症例は临床上、痔瘻癌であると診断した。

痔瘻癌は全痔瘻の0.1%<sup>6)</sup>に発生する稀な癌である。多くの場合背景となる痔瘻は深部痔瘻であり、その診断は困難である。加川ら<sup>7)</sup>、Yamaguchiら<sup>8)</sup>は粘液産生性の痔瘻癌に特徴的なMRI所見が診断に有用であると報告している。MRIのT2強調画像で粘液湖の集合部位は顆粒状の強い高信号の集合として描出され粘液癌の存在を示唆するが、痔瘻の膿瘍はT2強調画像にて高信号となり内部は一様、顆粒集合像を呈することはないとい

うものである。本症例も坐骨直腸窩の膿瘍は内部が均一であり生検で癌は認めず、骨盤直腸窩の顆粒集合様領域は病理学的に癌の存在が確認された。痔瘻癌のうち約半数が粘液癌である<sup>9)10)</sup>ことを考えると有用な所見と考える。また、本症例は痔瘻癌の発育過程をMRIで追うことができた点で非常に興味深い。初回のMRI T2強調画像で高信号に描出された骨盤内の瘻管・膿瘍内にその後、隔壁様構造が出現、その数が増し、最終的に分様状の顆粒集合様所見となった。これらの所見は、痔瘻癌の更なる早期診断に役立つと考える。

痔瘻癌を確定診断するには複数回の生検が必要となることが多い。加瀬ら<sup>11)</sup>は一回の生検のみでの診断率は42.9%で偽陰性が多いと報告している。術前に分泌粘液細胞診、生検で診断がつかず画像所見で痔瘻癌と診断し治療されることはまれである。PubMedでmucinous adenocarcinoma・fistula in ano・MRIで検索したが該当症例はなかった。医中誌では痔瘻癌・術前診断・MRIで検索すると三口ら<sup>12)</sup>の1例のみ該当した。MRI T2強調画像で高信号を示す顆粒状の病変が集簇していたというもので、今回の所見と同様であった。今後、粘液産生性痔瘻癌のMRI所見が広く認識されるようになることが望まれる。

## 結 語

MRI画像で経過観察し、特徴的な顆粒集合様所見を示した痔瘻癌の1例を経験した。

## 参 考 文 献

- 1) Rosser C: The etiology of anal cancer. *Am J Surg* 11: 328-333, 1931.
- 2) Skir I: Mucinous adenocarcinoma associated with fistula of long-standing. *Am J Surg* 75: 285-289, 1948.
- 3) 隅越幸男, 岡田光生, 岩垂純一, 竹之下誠一, 柳田 通, 有輪六朗: 痔瘻癌. *日本大腸肛門病学会誌* 34: 467-472, 1981.
- 4) Loy TS and Calaluce RD: Utility of cytokeratin immunostaining in separating pulmonary adenocarcinomas from colonic carcinomas. *Am J Clin Pathol* 102: 764-767, 1994.
- 5) Hobbs CM, Lowry MA, Owen D and Sobin LH: Anal gland carcinoma. *Cancer* 92: 2045-2049, 2001.
- 6) McAnally AK and Dockerty MB: Carcinoma developing in chronic draining cutaneous sinuses and fistulas. *Surg Gynecol Obstet* 88: 87-96, 1949.
- 7) 加川隆三郎, 斎藤 徹, 宮岡哲郎, 南 亮, 奥村亮介: 痔瘻癌におけるMRI診断の有用性. *日臨外会誌* 60: 2183-2188, 1999.
- 8) Yamaguchi T, Kagawa R, Takahashi H, Takeda R, Sakata S and Nishizaki D: Diagnostic implications of MR imaging for mucinous adenocarcinoma arising from fistula in ano. *Tech Coloproctol* 13: 251-253, 2009.
- 9) Rundle FF and Hales IB: Mucoïd carcinoma supervening on fistula in ano, its surgical pathology and treatment. *Ann Surg* 137: 215-219, 1953.
- 10) Kline RJ, Spencer RJ and Harrison EG Jr: Carcinoma associated with fistula in ano. *Arch Surg* 89: 989-994, 1964.
- 11) 加瀬 卓, 小平 進, 寺本龍生, 久 晃生, 古川和男, 山口 博, 捨田 利, 外 茂夫, 長谷川博俊, 郭 宗宏, 西堀英樹, 北島政樹, 向井万起男: 痔瘻に随伴した肛門管癌7例の検討. *日消外会誌* 25: 2055-2059, 1992.
- 12) 三口真司, 恵木浩之, 中原英樹, 眞次康弘, 小橋俊彦, 角舎学行, 大森一郎, 橋本慎二, 森本博司, 田中飛鳥, 福原敏行, 西坂 隆, 波多野裕二, 漆原 貴, 福田康彦: 術前診断に難渋した痔瘻癌の1例. *消化器外科* 32: 1507-1514, 2009.

(平成24年2月29日受付)