
症例報告

肛門腺由来肛門管粘液癌の1例

山下 哲郎*, 米田 政幸

舞鶴医療センター外科

A Case of Mucinous Adenocarcinoma of the Anal Gland

Tetsuro Yamashita and Masayuki Yoneda

Department of Surgery, Maizuru Medical Center

抄 録

症例は63歳の男性。主訴は肛門周囲の腫瘍。切開にてアテローム内容に類似した物質を認め病理学的に悪性細胞が認められず嚴重経過観察としたが、1年半後に腫瘍の増大を認め嚢胞腔の全開放を行ないゼリー状物質の排出と生検にて粘液癌の診断を得たため、直腸切断術を施行した。摘出標本では白色充実性の腫瘍成分と内腔に黄色のゼリー状粘液の貯留が見られ、病理学的に肛門腺由来肛門管粘液癌と診断された。本疾患は頻度が低い疾患であるが痔疾患と類似した臨床症状を示すことがあり、また組織学的確定診断が得られにくいため鑑別診断に注意が必要である。肛門疾患の診察にあたって特に肛門部腫瘍を訴える症例において本疾患の存在を念頭に置くことが重要である。

キーワード：肛門管癌，粘液癌，肛門腺由来。

Abstract

The patient was a 63-year-old male with a perianal mass. After an incision, material resembling the content of an atheroma was observed. Since pathological examination showed no malignant cells, strict follow-up was performed. After 1.5 years, the mass size increased. The cyst wall was completely open, and a jelly-like material was drained. As a result of biopsy, a diagnosis of mucinous adenocarcinoma was made, and abdominoperineal rectal amputation was performed. The resected specimen showed white solid-mass components and the retention of yellow jelly-like mucus in the cavity, and a pathological diagnosis of mucinous adenocarcinoma of the anal gland was made. The incidence of mucinous adenocarcinoma of the anal gland is low. However, since this disease sometimes shows clinical findings similar to those of hemorrhoidal disease, and a definite histological diagnosis is difficult, careful differential diagnosis is necessary. In patients with anal disease, particularly an anal mass, the possibility of this disease should also be considered.

Key Words: Anal canal carcinoma, Mucinous adenocarcinoma, Anal gland origin.

はじめに

肛門腺由来癌は病変の主座が肛門管壁内にあり粘膜に癌組織がほとんど認められない極めて稀な腺癌である¹⁾とされており、肛門腺由来肛門管粘液癌は痔疾患と類似する臨床症状を示すことが多く診断に注意を必要とする。今回我々は経時的变化に乏しかった肛門腺由来肛門管粘液癌の切除例を経験したので報告する。

症 例

患 者：63歳，男性。

主 訴：肛門周囲の腫瘍。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：15年前に直腸ポリープ切除。以前に肛門疾患の既往なし。

現病歴：2009年6月，肛門周囲に腫瘍を自覚し当院を受診した。

来院時現症：身長177cm，体重74kg，血圧110/70mmHg，脈拍72/分，体温36.5℃，直腸指診にて肛門管周囲4時方向に約3cm大の弾性軟，可動性良好な腫瘍を認め軽度の圧痛を認めた。肛門鏡では肛門管，直腸の粘膜に異常を認めなかった。

初診時血液生化学検査：血液生化学所見に特記すべき異常なくCEA，CA19-9は正常範囲であった。

画像検査および臨床経過：初診時のCTにて

肛門の左後方に約3cmの辺縁に一部石灰化を伴う嚢胞性腫瘍が認められた(図1)。また超音波検査にて肛門左後方に嚢胞性腫瘍が見られた(図2)。穿刺吸引細胞診で悪性所見を認めず，局麻下に嚢胞の切開を行なったところ感染性アテローム内容に似た物質の排出があり病理検査では組織球，間葉系細胞，粘液を認め異型細胞を認めないとの所見であった。画像検査と総合して肛門周囲膿瘍，肛門管腫瘍の可能性を考慮した。しかし腫瘍の摘出を行なうと肛門管壁と括約筋の損傷を来す可能性が高く，また患者の強い希望もあり約3か月毎に超音波検査を行ないながら厳重経過観察とすることとしたが2010年の6月まで腫瘍のサイズや性状に著変は認めなかった(図2)。

2010年9月に患部の疼痛と腫張を訴えたためMRIを施行した。37×38mm大の多房性嚢胞性腫瘍であり2009年6月のCTと比較して増大傾向を認めた(図3)。肛門管粘液癌疑いの診断で切除を強く勧めたがやはり患者が経過観察を希望された。2011年1月に腫瘍の増大と疼痛にて受診し，CTで嚢胞性腫瘍の増大と嚢胞壁の造影効果を認めた(図4)ため腰椎麻酔下に嚢胞腔の全開放を施行したところ，ゼリー状物質と膿の流出を認め肛門管粘液癌と考えられ腫瘍部の生検で粘液癌の確定診断を得た。大腸内視鏡検査では直腸肛門管の粘膜面は正常であった(図5)。以上より肛門管粘液癌の診断で直腸切

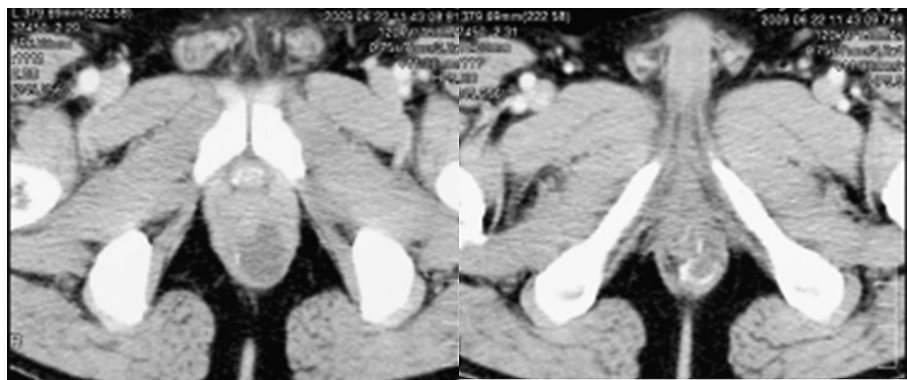


図1 初診時の造影CT検査：肛門左後方に辺縁に一部石灰化を伴う嚢胞性腫瘍影を認めた。

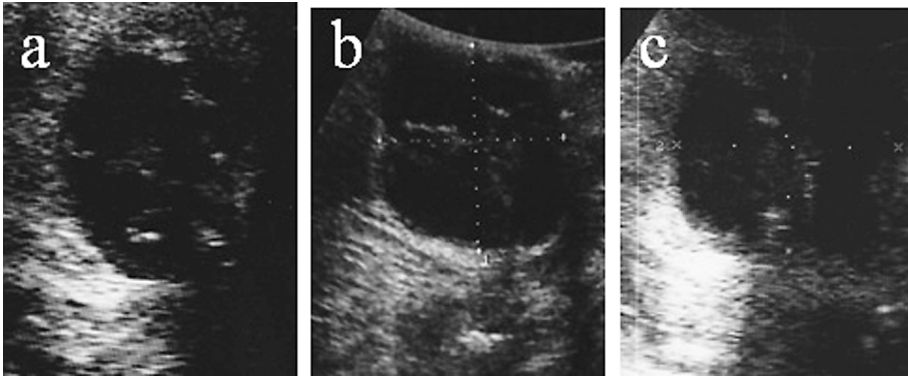


図2 超音波検査の経時的変化：肛門左後方の嚢胞性腫瘍は1年の経過でサイズ、内部エコーの性状に変化がなく明らかな壁在結節も認めなかった（a：2009年6月初診時，b：2009年12月，c：2010年6月）。

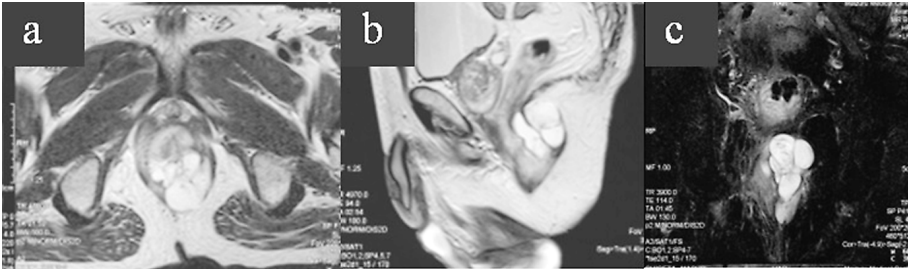


図3 MRI検査（2010年9月）：肛門周囲にT2強調にて高信号を呈する多房性嚢胞性腫瘍を認め増大していた（図3a：T2強調冠状断，図3b：T2強調矢状断，図3c：T2強調脂肪抑制前額断）。

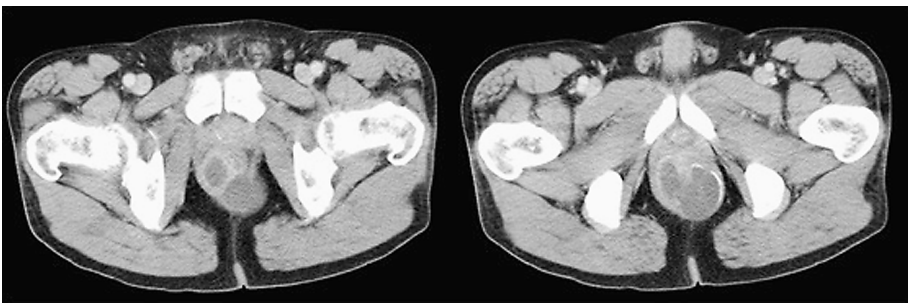


図4 術前の造影CT検査：肛門周囲の嚢胞性腫瘍は増大し嚢胞の辺縁に造影効果を認めた。嚢胞辺縁の石灰化も認めた。

断術を施行した。

手術所見：腹腔内に転移の所見はなかった。会陰操作にて前回手術時に嚢胞腔内に挿入したドレーンから色素注入を施行し嚢胞壁を損傷し

ないように注意しながら、腫瘍と十分な切離マージンをとって腹会陰式直腸切断術を施行した。単径リンパ節郭清は施行しなかった。

切除標本肉眼所見：下部直腸，肛門管の壁外

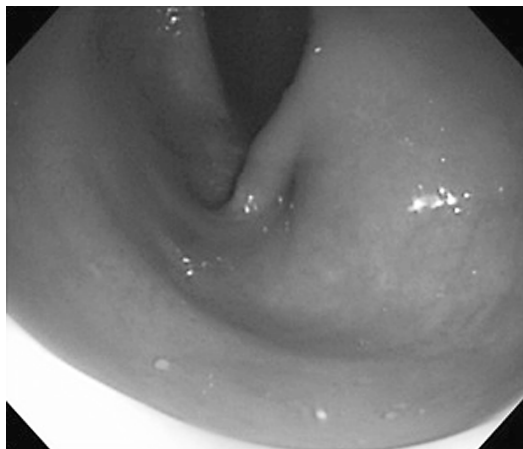


図5 大腸内視鏡検査：直腸の粘膜面に異常を認めなかった。

に発育する多房性嚢胞性腫瘍であり嚢胞内腔に黄色ゼリー状の粘液貯留を認めた(図6)。粘膜面の異常は見られなかった。

病理組織学的検査：肛門管粘膜下以深に粘液結節を形成する腫瘍で、嚢胞壁には明瞭な管状乳頭構造をとる腺癌を認めた(図7)。癌は肛門管固有筋層を超えて肛門括約筋内に浸潤していたが粘膜面に癌組織を認めなかった。以上より肛門腺由来肛門管粘液癌、muc, pA, int, INFa, ly0, v0, pPM0, pDM0, pRM0, pN0, pStage II (大腸癌取扱い規約第7版¹⁾)と診断した。

術後経過：経過は良好であった。補助化学療法としてUFT, ユーゼルを3コース行ない以後は経過観察としているが術後2年8か月経過に

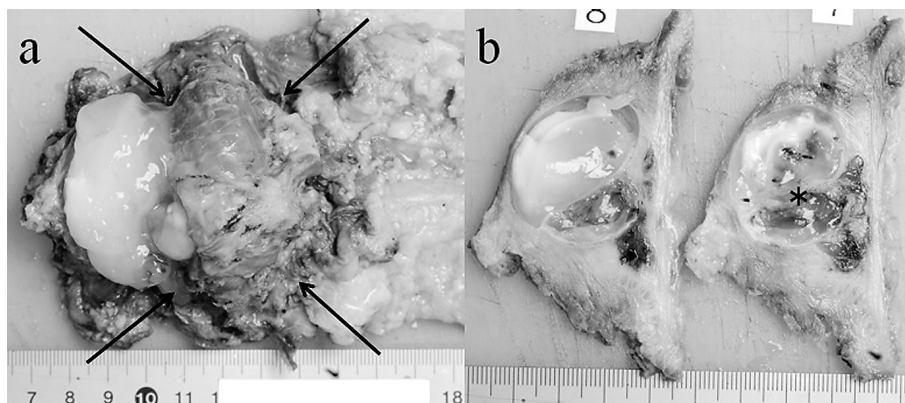


図6 摘出標本写真：内腔にゼリー状の粘液を含む腫瘍(→の範囲)(図6a)。断面では嚢胞壁に腫瘍成分を有する多房性腫瘍であった(図6b)。

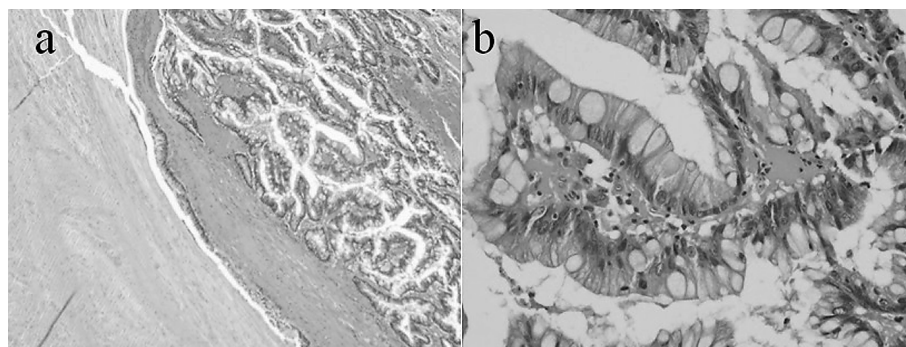


図7 病理組織所見(図6bの*の部分)：嚢胞内に粘液貯留を認め嚢胞壁には管状乳頭状構造をとる高分化腺癌を認めた(図7a：x40, 図7b：x200)。

て再発を認めていない。

考 察

肛門管癌の頻度は大腸癌の2~5%と報告されている²⁾。肛門管に発生する腺癌は大腸癌取扱規約¹⁾によると通常の腺癌と粘液癌を含む直腸型癌、肛門腺由来癌、痔瘻に合併した腺癌の3つに分類される。頻度としては肛門管直腸粘膜部に発生する直腸型癌が最も多く、肛門腺由来癌は病変の主座が肛門管壁内にあり粘膜に癌組織がほとんど認められない極めて稀な腺癌であるとされる¹⁾。自験例は痔瘻の既往がなく粘膜面に異常所見を認めず粘膜下から壁外に粘液性腫瘍を形成している点で肛門腺由来粘液癌と考えられた。肛門腺由来粘液癌の報告例は極めて少ない。医学中央雑誌で1983年から2013年の範囲で「肛門腺由来」「粘液癌」をキーワードとして検索すると12例、会議録を除くと7例の報告³⁻⁹⁾を認めるのみであった(表1)。

大腸癌において粘液癌の占める割合は5.5~6.5%¹⁰⁾¹¹⁾であるが、肛門管癌における粘液癌の比率は24%と報告されており比較的頻度が高い。大腸粘液癌はリンパ節転移率、壁深達度、腹膜播種陽性率が高度な症例が多く非粘液癌と比べて有意に予後が不良であるという報告¹⁰⁾があるが、治癒切除例については高分化型大腸癌と比べて予後に差が無いとの報告が多い¹²⁻¹⁴⁾。肛門管癌ではリンパ節転移率は44%であるが肛門管粘液癌では23%と比較的低率であり肛門管粘液癌の予後は分化型では腺癌と扁平上皮

癌より良好と報告されている²⁾。

肛門管癌の症状は肛門出血、肛門部痛、肛門部腫瘍が多く痔疾患と共通する症状が多いため診断に難渋することが多い³⁾。肛門管癌は比較的患者自身が愁訴として気づきやすい疾患と思われるが、早期に発見される事は少ない¹⁵⁾。その理由として竹内らは患者側の羞恥心や痔疾患との思い込みによる受診の遅れと医療側の大腸内視鏡検査での肛門管の観察の困難さを問題点に挙げている⁴⁾。

自験例において初診から確定診断まで1年7か月を要した点は反省すべき点である。初診時に穿刺吸引細胞診を行ない悪性所見がなく腫瘍を切開し内容物を掻き出して病理検査に提出したが悪性所見を得ることができなかった。肛門管粘液癌は穿刺吸引細胞診が診断に有用とする報告¹⁶⁾があり、経過観察時において再度の細胞診を施行していれば粘液癌の診断に至った可能性があると考えられる。また生検で早期診断に至らなかった原因として充実性成分が少ない腫瘍であり生検で腫瘍細胞の採取ができなかったことが考えられる。岡田らは痔瘻に関連する肛門管粘液癌において生検で悪性所見を得るのが困難であった場合で、病態、画像、細胞診所見から肛門管粘液癌を疑ったならば切除を考慮してよいと報告している¹⁷⁾。また澤田らは肛門壁外に嚢胞性に発育した粘液癌の診断は容易でなく、肛門周囲に突出しない壁外腫瘍の場合は生検困難な場合があり、CTガイド下あるいはUSガイド下生検が有用であると述べており⁵⁾ 肛門

表1 肛門腺由来粘液癌の本邦報告例。

著者	出版年	年齢/性	CEA	術前診断	確定診断法	術式	深達度	最大径	N	stage	予後
大東	1998	70/F	4.6	肛門管癌, 管外性発育型	生検	直腸切断術	A	27mm	NO	II	6月生
小澤	1999	不明	不明	肛門管癌	生検	直腸切断術	A	50mm	N2	IV	不明
岸渕	2000	56/M	10.1	肛門腺由来粘液癌	生検	直腸切断術	A	150mm	NO	II	10月生
石山	2008	30代/M	2.1	肛門管癌, 管外性発育型	細胞診	直腸切断術	AI	115mm	NO	II	1年9月生
澤田	2009	73/M	8.1	肛門嚢胞腺癌疑い	術後病理	直腸切断術	AI	60mm	NO	II	1年4月生
山本	2009	71/M	3.1	肛門管癌	生検	直腸切断術	A	35mm	NO	II	不明
竹内	2012	55/F	2.6	肛門管粘液癌	切除生検	直腸切断術	MP	5mm	NO	I	1年6月生
自験例	2013	63/M	3.7	肛門管粘液癌	生検	直腸切断術	A	37mm	NO	II	2年8月生

管粘液癌の診断の困難性が多く報告されている。また悪性疾患を疑った場合でも肛門管周囲の腫瘍の場合、腫瘍の摘出を行なうと肛門括約筋機能の障害から QOL の重大な低下を来たす可能性があるため、組織学的確定診断を得られない症例では摘出を躊躇する原因となりやすく非常に注意が必要である。

自験例では初診後も約 3 か月毎に視触診と超音波検査にてフォローアップを行なっていたが 1 年 3 か月間は腫瘍の増大は全く認めなかった。病理組織所見では癌の脈管侵襲は見られずリンパ節転移もなく、また 2 年 8 か月の術後経過にて局所再発、側方リンパ節や鼠径リンパ節への転移再発も見られていない。肛門管癌の中では粘液癌はリンパ節転移の頻度が低いという報告²⁾や嚢胞様形態をとる粘液癌はリンパ節転移が少なく膨張性に発育すること等から予後が比較的良好とされるという報告⁵⁾が見られており、本症例においても比較的生物学悪性度の低い腫瘍であったと推測される。

画像所見は本疾患が多房性の嚢胞様形態をとることが多いことから非常に特徴的である。CT では腫瘍内の粘液のため低濃度の腫瘍となり、不均一に造影され時に石灰化をともなう嚢胞性腫瘍となる⁶⁾¹⁸⁾。また MRI がきわめて有用である。T2 強調画像で高信号を示す分葉状の嚢胞性腫瘍として認められ、壁の不整像があり充実部分は遅延性に濃染され、壁の厚さは良悪性の鑑別の指標にならないとされる⁶⁾。また浸潤範囲の診断や再発の診断にも有効であると報告されている³⁾。自験例においても上記所見を満たす特徴的形態を示していた。肛門部腫瘍の症例について本疾患が念頭にあれば特徴的画像所見より、確定診断に至ることは難しくないと考えられる。

肛門管粘液癌の治療は深達度、周囲への浸潤度、転移の有無などにより決定されるが切除が原則であり腹会陰式直腸切断術が選択されることが多く、その際十分な surgical margin をとることが重要とされる³⁾⁵⁾⁷⁾。切除にあたり単径リンパ節の予防的郭清を行なうかどうかは意見が分かれている。林らは肛門管癌のリンパ節転移率は 44% でその内粘液癌は 23% で低率であり、単径リンパ節転移は肛門管癌で 24%、粘液癌では 15% と比較的 low rate であると報告している²⁾。しかし隅越らは粘液癌の単径リンパ節転移率は 25.7% と高率であり、侵襲の少ない浅単径リンパ節までの郭清を原則行なうと報告している¹⁹⁾。更なる症例の集積が必要と考えられるが、術前に腫大を認める症例以外は単径リンパ節の予防的郭清は行なっていないという報告³⁾⁵⁾⁷⁾が多く、自験例でも予防的郭清を施行していない。しかし安井らは肛門腺由来粘液腺癌 15 例の内、3 例に単径リンパ節転移再発を認めたと報告²⁰⁾しており再発の好発部位と考えられ、術後フォロー時において単径部の触診および画像検査が重要である。

おわりに

経時的変化に乏しかった肛門腺由来肛門管粘液癌の一例を経験したので文献的考察を加えて報告した。肛門管粘液癌は痔疾患と類似した臨床症状を示し、また組織学的確定診断が得られにくいため鑑別診断に注意を要すると考えられる。肛門疾患の診察にあたって特に肛門部腫瘍を訴える症例において本疾患の存在を念頭に置くことが重要であると考えられた。

開示すべき潜在的利益相反状態はない。

文 献

- 1) 大腸癌研究会編. 大腸癌取扱規規約 第 7 版補訂版. 金原出版 2009.
- 2) 林 賢, 広田映五, 板橋正幸, 北條慶一, 森谷亘皓, 沢田俊夫. 肛門管癌の臨床病理学的検討. 日消外

会誌 1989; 22: 2414-2420.

- 3) 岸渕正典, 柳生俊夫, 安井昌義, 森 武貞. 骨盤 MRI 検査が浸潤範囲の診断に有用であった偽粘液腫様の肉眼形態を示した肛門腺由来粘液癌の 1 例. 日本大腸

- 肛門病会誌 2000; 53: 227-230.
- 4) 竹内信道, 久保直樹, 荻原裕明, 中山 中, 芳澤淳一, 伊藤憲雄. 肛門ポリープ様病変で発見された肛門管粘液癌の1例. 日臨外会誌 2012; 73: 2320-2323.
 - 5) 澤田俊哉, 吉川雅輝, 小棚木均. 肛門周囲に嚢胞様発育した粘液癌の2例. 日本大腸肛門病会誌 2009; 62: 250-256.
 - 6) 山本泰宏, 三船啓文, 久保田暢人, 上塚大一, 太田保, 金澤 右. 拡散強調画像が診断に有用であった肛門管粘液癌の1例. 臨放 2009; 54: 653-657.
 - 7) 大東誠司, 小川真一郎, 棚瀬信太郎, 西尾剛毅, 荒川健二郎. 肛門腺由来粘液癌の1例. 日消外会誌 1998; 31: 2284-2287.
 - 8) 石山智敏, 鈴木知信, 神宮 彰, 松本秀一, 菊地二郎, 岡田厚夫. 薄筋皮弁で会陰部を充填した肛門腺由来粘液癌の1例. 臨外 2008; 63: 1119-1122.
 - 9) 小澤広太郎, 山本哲久, 市倉 隆, 望月英隆. 肛門腺由来肛門管癌5例の臨床病理学的研究. 日本大腸肛門病会誌 1999; 52: 353-358.
 - 10) 弥政晋輔, 廣田映五, 板橋正幸, 北條慶一, 森谷宜皓, 沢田俊夫. 大腸粘液癌の臨床病理学的検討. 日消外会誌 1988; 21: 75-81.
 - 11) 金川泰一朗, 岡島邦雄, 水谷 均, 豊田昌夫, 丸川治, 西野弘志, 李 喬遠. 大腸粘液癌の臨床病理学的検討. 日本大腸肛門病会誌 1992; 45: 837-842.
 - 12) 土田知史, 塩澤 学, 菅野伸洋, 森永聡一郎, 赤池信, 杉政征夫, 武宮省治, 亀田陽一, 利野 靖, 今田敏夫. 大腸粘液癌の臨床病理学的検討. 癌の臨 2008; 53: 519-523.
 - 13) 豊田和広, 中塚博文, 藤高嗣生, 眞次康弘, 杉 桂二, 小川尚之, 大城久司, 谷山清己. 大腸低分化腺癌・粘液癌の検討. 外科 2003; 65: 838-843.
 - 14) 大畑昌彦, 小山 勇, 安西春幸, 鈴木義隆, 新井庸倫, 沼尻良克, 渡辺拓自, 篠塚 望, 松本 隆, 山崎達雄, 尾本良三, 新井栄一. 大腸粘液癌症例の臨床病理学的検討. 日外科系連会誌 1998; 23: 954-930.
 - 15) 稲次直樹. 日本における肛門管悪性腫瘍性病変の現況. 日本大腸肛門病会誌 2008; 61: 967-970.
 - 16) 河野真由美, 渡辺昌三, 河岡久美子, 山下 葵, 大野絵美, 有廣光司, 中山宏文, 谷山清己. 穿刺吸引細胞診が診断に有用であった肛門腺管由来肛門管原発粘液癌の1例. 日臨細胞会誌 2012; 51: 178-182.
 - 17) Okada K, Shatari T, Sasaki T, Tamada T, Suwa T, Furuuchi T, Takenaka Y, Hori M, Sakuma M. Is histopathological evidence really essential for making a surgical decision about mucinous carcinoma arising in a perianal fistula? Report of a case. Surg Today 2008; 38: 555-558.
 - 18) 坂本 力, 井本勝治, 村上陽子, 相戸伸仁, 齊藤康晴, 南部卓三, 山崎道夫, 古川 颯, 田中豊彦. 直腸, 肛門のCT・MRIの診断法. 胃と腸 2003; 38: 1263-1273.
 - 19) 隅越幸男. 肛門癌に関するアンケート調査報告. 日本大腸肛門病会誌 1982; 35: 92-97.
 - 20) 安井昌義, 柳生俊夫, 三嶋秀行. 肛門腺由来粘液腺癌15例の検討. 日消外会誌 1996; 29: 1526.