

## 膀胱皮膚瘻造設後30年目に発生した膀胱腺癌の1例

提箸隆一郎, 市村 靖, 飯沼 昌宏  
 国立病院機構水戸医療センター泌尿器科

PRIMARY ADENOCARCINOMA OF THE BLADDER AT  
 THE VESICOCUTANEOSTOMY SITE OCCURRING  
 30 YEARS AFTER THE OPERATION

Ryuichiro SAGEHASHI, Yasushi ICHIMURA and Masahiro IINUMA  
*The Department of Urology, Mito Medical Center*

We report a rare case of primary adenocarcinoma in an 82-year-old man that developed 30 years after vesicocutaneostomy was performed to treat pelvic fractures and urethral injury sustained in a traffic accident. He was lost to follow-up after the surgery. However, he presented again at our hospital with gross hematuria. We detected adenocarcinoma at the edge of the vesicocutaneostomy site in the cystoscopic examination and biopsy findings through the stoma. Computed tomography revealed no evidence of metastasis. We conducted radical cystectomy and abdominal wall resection around the vesicocutaneostomy site and ileal conduit formation. Histopathological examination of surgical specimens revealed primary adenocarcinoma of enteric metaplasia origin and skin involvement. The pathological diagnosis was T4b N0 M0 (stage IV) adenocarcinoma of the bladder. In our case, chronic irritation at the stoma was thought to have induced enteric metaplasia of the bladder epithelium and adenocarcinoma. Although the only symptom exhibited was mild gross hematuria, our case was of advanced cancer with skin involvement. Primary adenocarcinoma of the bladder is rare, and only a few cases of adenocarcinoma associated with vesicocutaneostomy have been reported. However, careful examination should be performed to avoid overlooking malignant tumors in cases with bleeding from the vesicocutaneostomy site.

(Hinyokika Kyo 65 : 167-170, 2019 DOI : 10.14989/ActaUrolJap\_65\_5\_167)

**Key words :** Vesicocutaneostomy, Adenocarcinoma

## 緒 言

膀胱腺癌には膀胱上皮から発生する原発性腺癌と尿膜管遺残から発生する尿膜管癌があるが、原発性膀胱腺癌は膀胱腫瘍全体の2%以下<sup>1)</sup>と頻度は低い。さらに膀胱皮膚瘻 stomas での発生についてはこれまでに数例の報告しかない。今回われわれは膀胱皮膚瘻に発生した原発性膀胱腺癌の1例を経験した。若干の文献的な考察を加えて報告する。

## 症 例

患 者 : 82歳, 男性  
 主 訴 : 肉眼的血尿  
 家族歴 : 特記事項なし

既往歴 : 52歳のときに交通外傷による骨盤骨折・尿道完全断裂のため、当院で膀胱皮膚瘻造設術による尿路変向を行った。以後パウチ貼付による stomas 管理が行われ、尿路変向後は当科への通院はなかった。

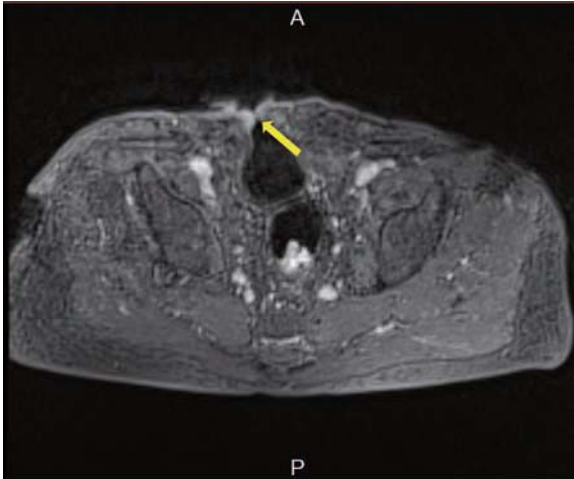
現病歴 : 2017年5月より膀胱皮膚瘻からの間欠的な肉眼的血尿があり、近医を受診した。血尿精査のため、同年6月に当科を紹介され受診した。



Fig. 1. Appearance of the stoma.

現 症 : 身長 159 cm, 体重 56.8 kg, BMI 22.4. 臍下正中に膀胱皮膚瘻 stomas を認めた (Fig. 1)。視診では stomas の粘膜に明らかな異常を認めなかった。

血液生化学検査 : WBC 5,400/ $\mu$ l, RBC  $363 \times 10^4$ / $\mu$ l, Hb 12.2 g/dl, Ht 37.1%, Plt  $13.8 \times 10^4$ / $\mu$ l, AST



**Fig. 2.** MRI showed the thickened bladder mucosa at the edge of the vesicocutaneostomy site.

26 U/l, ALT 22 U/l, ALP 241 U/l,  $\gamma$ -GTP 39 U/l, LDH 225 U/l, BUN 15.1 mg/dl, CRE 0.81 mg/dl, Na 144 mmol/l, K 4.2 mmol/l, Cl 108/mmol, Ca 9.0 mg/dl, CRP 0.07 mg/dl.

尿検査：肉眼的には淡黄色で混濁していた。沈渣は RBC 30~49/HPF, WBC 50~99/HPF, 細菌 (2+) であった。尿培養検査では *Providencia rettgeri*, *Enterococcus faecalis* が検出された。尿細胞診は class IIIb であった。

造影 MRI ではストマ付近に膀胱腫瘍をうたがう粘膜炎を認めた (Fig. 2)。造影 CT では上部尿路に異常所見はなく、リンパ節腫脹や他臓器転移は認めなかった。

ストマより軟性膀胱鏡を挿入し膀胱内を観察したところ、開口部近くに不整粘膜を認めた。膀胱鏡下に生検を行ったところ、円柱状腫瘍細胞の浸潤増殖を認め組織診断は腺癌であった。

臨床経過：諸検査より、腎盂・尿管・膀胱癌取扱い規約第1版に準じて cT1N0M0 の膀胱腺癌と診断した。

2017年10月に根治的膀胱全摘除術、回腸導管造設術を施行した。手術所見は、腹腔内臓器の癒着は少なかったが、膀胱や前立腺の背側は強く癒着しており剥離に難渋した。術前検査でストマ開口部付近に腫瘍を認めていたため、2 cm 以上のマージンをとるようにストマ周囲の皮膚を合併切除した (Fig. 3)。標本摘出後、標本に割を入れて腫瘍の局在を確認したところ、腫瘍は切除断端から十分に離れていたため術中迅速診断は行わなかった。手術時間は7時間28分、出血量は1,400 ml であった。

摘出標本では皮膚との境界部の膀胱粘膜に 35×30 mm 程の平坦な腫瘍を認めた (Fig. 4)。病理組織所見は、腸管に類似した高円柱状の腫瘍細胞の増殖と粘液



**Fig. 3.** The surgical specimens.



**Fig. 4.** The tumor at the edge of vesicocutaneostomy site.

湖の形成を認めた。腫瘍周囲の膀胱上皮は腸上皮様に化生しており、一部に異形性を認めた。腫瘍は膀胱皮膚瘻部の皮膚に浸潤しており、膀胱筋層へも浸潤していた (Fig. 5)。皮膚の切除断端、尿管断端、尿道断端はいずれも陰性であった。リンパ節転移や脈管侵襲は明らかでなかった。以上より、膀胱腺癌 pT4b, INfb, LV10, u-rt0, u-lt0, ur0, RM0, pN0 と診断した。術翌日に濃厚赤血球液を4単位輸注したが術後経過は良好であり、術後29日目に退院した。

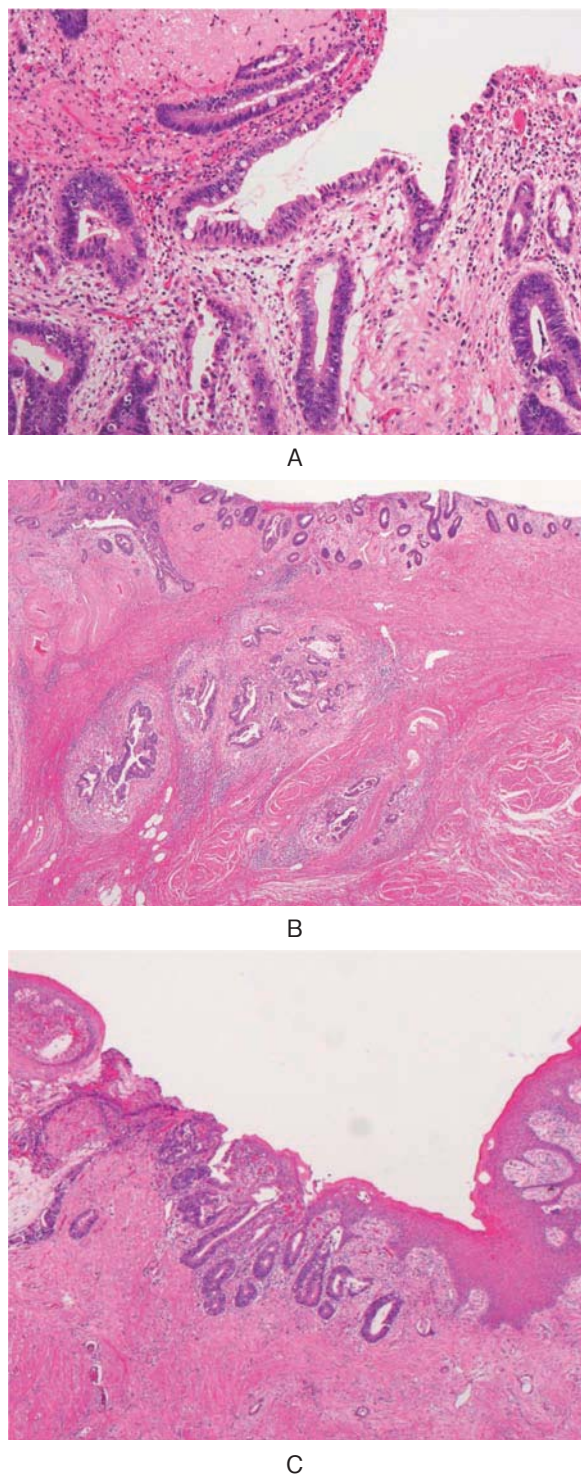
術後化学療法は未施行であるが、術後10カ月の時点で再発なく経過している。

## 考 察

膀胱皮膚瘻は小児の後部尿道弁<sup>2,3)</sup>や脊髄損傷に伴う神経因性膀胱の治療において、カテーテルフリーの達成を目的に用いられる尿路変向の1法である。本邦においては夏目、山本らにより女性頸随損傷患者における膀胱皮膚瘻の治療成績が報告されている<sup>5,6)</sup>が、膀胱瘻や膀胱皮膚瘻のストマ部に発生した腺癌の報告は海外でも数少ない<sup>6-9)</sup>。

膀胱に発生する腺癌には尿膜管遺残物由来、腸上皮化生由来、続発性の3型があり<sup>10)</sup>、腫瘍の発生部位や病理所見により分類される。Wheeler ら<sup>11)</sup>は原発性腺癌の特徴として、1) 膀胱底部または側壁への発生や、2) 嚢胞性膀胱炎や腺性膀胱炎の合併、3) 非癌性





**Fig. 5.** (A) Macrophotogram showed the enteric metaplasia around the tumor. (B) Macrophotogram showed muscle invasions. (C) Macrophotogram showed the skin involvement.

の膀胱上皮から腺癌への移行を認めることを挙げ、尿膜管由来のものについては、1) 膀胱頂部への発生や、2) 嚢胞性膀胱炎や腺性膀胱炎を認めないこと、3) 正常または潰瘍形成した膀胱上皮を有し粘膜下よりも筋層への浸潤傾向が強いこと、4) 尿膜管遺残物との連続性があること、5) 恥骨上に腫瘤がふれることを

挙げている。

自験例においては膀胱前壁を反転させ恥骨上の腹壁に縫合することで膀胱皮膚瘻を作成されていた。そのため腫瘍の発生部位は本来の膀胱前壁にあたり、尿膜管由来の腺癌の特徴と合致しない。また、病理組織においても腫瘍周囲に尿膜管遺残物はなく、腸上皮化生した膀胱上皮を母地に腺癌が発生したことを示す所見を認めた。腫瘍位置や病理所見より、本症例は腸上皮化生に由来する膀胱原発の腺癌と考えられる。

腺性化生や腺癌を来す原因として、尿路感染症や結石、外反膀胱などがある。外反膀胱と同様に自験例においても、ストマ開口部の粘膜外反部に慢性的な刺激が加わったことが成因となり、腸上皮化生と腺癌発生に至ったと予想される。

膀胱瘻や膀胱皮膚瘻に発生した腺癌の治療については膀胱部分切除・瘻孔部皮膚合併切除を行ったという報告<sup>9)</sup>もあるが、自験例では体表からの観察では腫瘍を視認できず、ストマからの軟性膀胱鏡検査でも腫瘍の正確な局在を特定するのは困難であったため、根治的膀胱全摘除術を施行するに至った。

82歳と高齢でありリンパ節転移も認めなかったため、今回われわれは術後補助化学療法を施行しなかったが、原発性膀胱腺癌に対する化学療法については結腸癌の治療に用いられる FOLFOX を中心としたレジメンが有効であったという報告が散見される<sup>12,13)</sup>。若年症例や再発のリスクが高いと予想される症例については、同様なレジメンを用いた補助化学療法を検討してもよいかもしれない。

自験例は皮膚や筋層浸潤を伴う進行性膀胱癌にもかかわらず、体表からの診察のみでは腫瘍の局在は不明であり症状も軽度の肉眼的血尿のみだった。膀胱皮膚瘻や膀胱瘻部の悪性腫瘍について本邦からの報告は稀有であるが、同部位からの出血を認めた際は悪性腫瘍の鑑別を遅滞なく行う必要がある。

## 結 語

膀胱皮膚瘻造設後30年目にストマ開口部に発生した腺癌の1例について、文献的な考察を加えて報告した。腫瘍の発生位置や病理所見より、自験例は腸上皮化生に由来した原発性の膀胱腺癌と考えられた。

## 文 献

- 1) Lynch CF and Cohen MB: Urinary system. *Cancer* **75**: 316-329, 1995
- 2) Misseri R and Glassberg KI: Surgery for posterior urethral valves. In: Glenn's Urologic Surgery. Edited by Keane TE, Graham SD Jr, et al.: 8th ed, pp 820-822, Wolters Kluwer, Netherlands, 2016
- 3) Asem Ravindra Shukla: Posterior Urethral Valves

- and Urethral Anomalies. In: Campbell-Walsh Urology. Edited by Alan J Wein, Louis R Kavoussi, Alan W Patin, et al. 11th ed, pp 3260-3263, ELSEVIER, Netherlands, 2016
- 4) 夏目 治, 高橋省二, 山本雅司, ほか: 女性頸随損傷患者の尿路管理に関する考察—膀胱皮膚瘻の経験—. 泌尿紀要 **36**: 271-274, 1990
  - 5) 山本雅司, 柏井浩希, 平山暁秀, ほか: 女性頸随損傷に対する膀胱皮膚瘻 (Cutaneous vesicostomy) の長期報告. 泌尿紀要 **43**: 263-266, 1997
  - 6) King DH, Barber DB, Farley NJ, et al.: Mucinous adenocarcinoma arising from a suprapubic cystostomy site without bladder involvement. J Spinal Cord Med **20**: 244-246, 1997
  - 7) Yohannes P, Hunter W and Prased M: Primary adenocarcinoma of cutaneous vesicostomy 40 years later. Arch Pathol Lab Med **128**: 58-59, 2004
  - 8) Bauman TM, Potretzke TA, Potretzke AM, et al.: Mucinous adenocarcinoma of the bladder associated with long term suprapubic tube: a case report. BMC Urol **15**: 119, 2015
  - 9) Libo M and Gui-zhong L: Mucinous adeno-carcinoma of the suprapubic cystostomy tract without bladder involvement. Urol J **14**: 4048-4051, 2017
  - 10) 大保亮一, 大園誠一郎: 腫瘍病理学. ベッドサイド泌尿器科学, 吉田 修監修. 改訂第4版. pp 503-505, 南江堂, 東京, 2013
  - 11) Wheeler JD and Hill WT: Adenocarcinoma involving the urinary bladder. Cancer **7**: 119, 1954
  - 12) Fan FS and Yang CF: Advanced primary nonurachal adenocarcinoma of urinary bladder responding to modified FOLFOX6 and capecitabine: a case report. Oxf Med Case Reports **8**: 256-260, 2018
  - 13) Tatli AM, Uyasal M, Goksu SS, et al.: Complete response of primary bladder adenocarcinoma with the FOLFOX4 regimen. Urol Int **94**: 363-365, 2015

(Received on September 25, 2018)

(Accepted on January 17, 2019)