

虫垂癌による膀胱虫垂瘻の1例

木村 章嗣^{1*}, 吉良慎一郎¹, 小出 晴久¹, 鈴木 鑑¹
 森武 潤¹, 平本有希子¹, 富田 雅之^{1**}, 清田 浩¹
 額川 晋², 石山 守^{3***}, 吉田 和彦⁴, 酒田 昭彦⁴

¹東京慈恵会医科大学附属葛飾医療センター泌尿器科

²東京慈恵会医科大学泌尿器科学講座

³東京慈恵会医科大学附属葛飾医療センター外科

⁴東京慈恵会医科大学附属葛飾医療センター病院病理部

VESICO-APPENDICEAL FISTULA CAUSED BY APPENDICEAL CANCER ; A CASE REPORT

Shoji KIMURA¹, Shin-ichiro KIRA¹, Haruhisa KOIDE¹, Kan SUZUKI¹,
 Jun MORITAKE¹, Yukiko HIRAMOTO¹, Masayuki TOMITA¹, Hiroshi KIYOTA¹,
 Shin EGAWA², Mamoru ISHIYAMA³, Kazuhiko YOSHIDA⁴ and Akihiko SAKATA⁴

¹The Department of Urology, The Jikei University Katsushika Medical Center

²The Department of Urology, The Jikei University

³The Department of Surgery, The Jikei University Katsushika Medical Center

⁴The Department of Pathology, The Jikei University Katsushika Medical Center

A case of vesico-appendiceal fistula caused by appendiceal cancer is reported. A 37-year-old male was admitted with the chief complaint of suspended dust in the urine. Under cystoscopy, a tumor (1 cm diameter) was found in the right posterior wall of the bladder. Transurethral resection of the bladder tumor was performed. The pathological outcome was intestinal metaplasia without malignancy. Preoperative abdominal computed tomography suggested vesico-appendiceal fistula, retrospectively. Therefore, appendectomy with partial cystectomy was attempted. However, the appendix was adhered to the sigmoid mesocolon, therefore, appendectomy, partial cystectomy, and sigmoid colectomy were performed. We diagnosed the tumor as mucinous adenocarcinoma. The patient has been receiving adjuvant chemotherapy with tegafur-gimeracil-oteracil potassium for 17 months, because he refused right hemicolectomy. There was no evidence of recurrence after 58 months of follow-up. Vesico-appendiceal fistula caused by appendiceal cancer is very rare. Our case is the 21st case reported in Japan.

(Hinyokika Kiyō 61 : 95-98, 2015)

Key words : Vesico-appendiceal fistula, Appendiceal cancer

緒 言

膀胱虫垂瘻は虫垂炎などの炎症性疾患や虫垂癌が原因となって発症する稀な疾患である。今回われわれは虫垂癌が原因となった膀胱虫垂瘻の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者 : 37歳, 男性

主 訴 : 尿に白色の浮遊物を認める。

既往歴 : 2008年11月から急性膀胱炎を繰り返していた。

家族歴 : 特記すべきことなし。

現病歴 : 2009年9月, 主訴が出現したため当科を受診した。初診時には排尿痛, 頻尿, 残尿感などの膀胱炎症状はなく, 発熱もなかった。

身体所見 : 身長 170 cm, 体重 64 kg, 体温 37.0°C, 胸腹部および外性器に特記すべき所見は認められなかった。

検査所見 : 尿沈渣で赤血球 5~9/HPF, 白血球 20~29/HPF, 尿細胞診 class II, 尿培養で大腸菌 (10⁵ CFU/ml) を認めた。肉眼的血尿は一度も認めていなかった。膀胱鏡にて後壁に径 1 cm の非乳頭状の膀胱腫瘍を認めた (Fig. 1)。血液生化学検査では WBC 5,300/μl, Cr 0.74 mg/dl, CRP 0.1 mg/ml であった。

経 過 : 膀胱腫瘍と診断し, 2009年10月, 経尿道的膀胱腫瘍切除術を施行した。腫瘍は憩室様の陥凹部か

* 現 : 東京慈恵会医科大学泌尿器科学講座

** 現 : 佼成病院泌尿器科

*** 現 : 東京慈恵会医科大学外科学講座

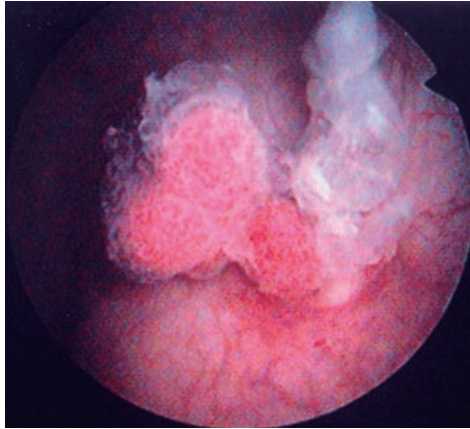


Fig. 1. Non-papillary solitary tumor with a diameter of 1 cm at right lateral bladder wall under the cystoscope.

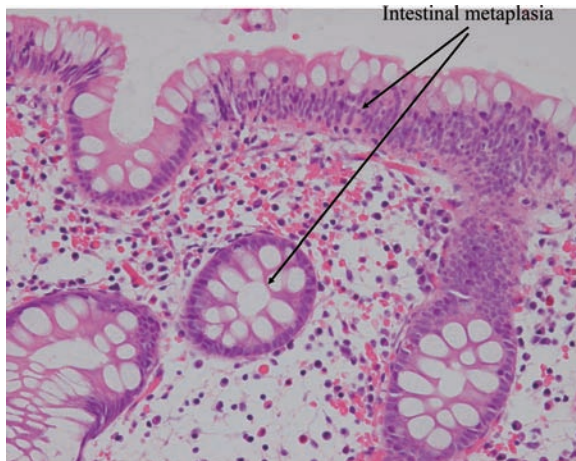


Fig. 2. Intestinal metaplasia in the specimen obtained by transurethral resection.

ら発生しており腫瘍の完全な切除はできなかった。このときの切除標本の病理は腸上皮化生という回答であった (Fig. 2)。この病理結果を受け、術前に行っていた腹部 CT を改めて見直したところ虫垂と膀胱の癒着が疑われ (Fig. 3)、術後に行った腹部 MRI 検査も同

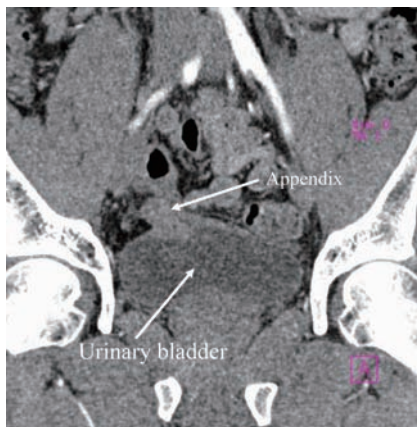


Fig. 3. Adhesion of appendix to urinary bladder (arrow) on CT.

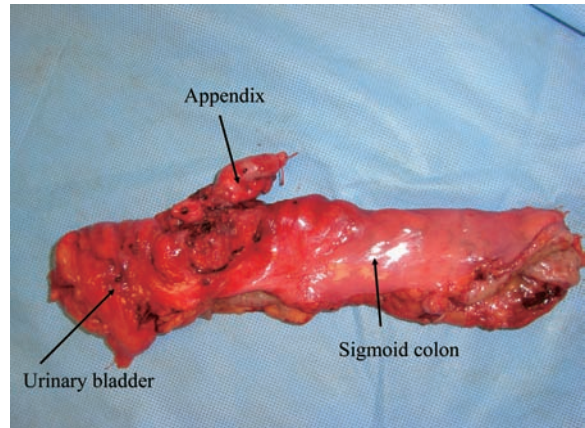


Fig. 4. Surgical specimen.

様の所見であったため、膀胱虫垂瘻と診断した。この時点では CEA 2.1 ng/dl, CA19-9 9 IU/dl であった。2009年12月、開腹手術を施行した。腹腔から観察すると腫大した虫垂が膀胱後壁に陥入し、S 状結腸間膜とも癒着し剥離不可能であったため膀胱部分切除、および虫垂・S 状結腸切除術を施行した。

このときには尿管に浸潤はなく、水腎も認めなかった (Fig. 4)。摘出標本の病理で虫垂には粘液囊胞腺腫および一部異型を伴い固有筋層に浸潤する虫垂粘液囊胞腺癌 (mucinous cystadenocarcinoma) であり、S 状結腸漿膜に浸潤を認めたが切除断端は陰性であった (Fig. 5)。手術時間は285分、出血量は 450 mlであった。虫垂癌の標準的治療は右半結腸切除術+所属リンパ節郭清であるが本人が再開腹術を拒否されたため、tegafur-gimeracil-oteracil potassium (100 mg/日) によるアジュバント化学療法を17カ月間当院外科で施行し、術58カ月後の現在、再発を認めず経過観察中である。

考 察

膀胱腸瘻は S 状結腸、直腸、回腸の順で高頻度に発生するとされ、膀胱虫垂瘻は膀胱腸瘻の 3～9% に認

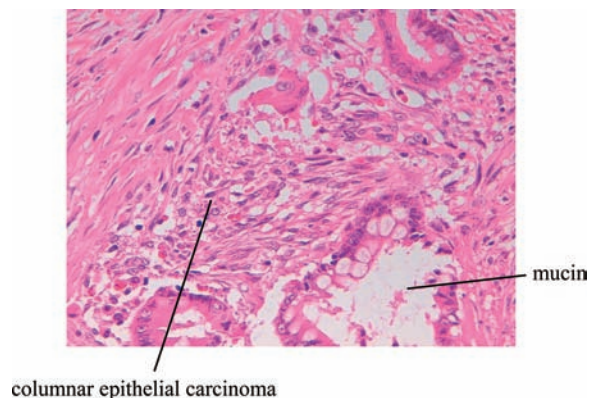


Fig. 5. Mucin producing columnar epithelial carcinoma with invasion to the proper muscular layer of appendix.

められると報告されている¹⁾. 本邦においては1936年の落合の報告²⁾が最初で, 自験例は医中誌で調べた限りでは51例目にあたる. 発生年齢は平均45歳, 男女比は3:2と青年男性に多く認められる. これは虫垂炎の後発年齢が20~30歳代であること, 女性では子宮附属器が膀胱と虫垂の間に存在するため膀胱虫垂瘻が起こりにくいと考えられる. 主訴は排尿時痛, 膿尿などの膀胱炎症状が多く, 膀胱腸瘻に特徴的な気尿や糞尿は少ない. これは虫垂が細長く, 内腔が狭いことによると考えられる³⁾. 術前診断は非常に難しく, 本症例のように膀胱鏡検査では膀胱後壁右側寄りの隆起性病変を認めることが多いが, 瘻孔の存在が確認されたのは過去の症例では約4割にすぎない. われわれの調べによると術前診断可能であった症例は26例であった. 原因として虫垂炎が最も多いが, 本症例のような原発性虫垂癌による膀胱虫垂瘻の報告は非常に稀である. 原発性虫垂癌自体が稀な疾患であり, 71,000例の虫垂切除例中0.082%に癌の発生が認められるとしている⁴⁾. 病理学的に, 1) carcinoid, 2) mucinous, cyst-

adenocarcinoma, 3) adenocarcinoma of colonic type の3型に分類される. 診断には, 大腸内視鏡検査での虫垂開口部の腫瘍が認められた場合を除いて, 注腸造影X線検査での虫垂の描出不良や不整な内腔像, CT, MRIによる回盲部の腫瘍像などから間接的に虫垂癌の存在を疑わなければならない.

文献上, 虫垂癌膀胱浸潤の報告は, 1980年 Bischoffの報告⁵⁾が最初であり, 海外での報告はPubMedで検索する限りでは3例であった⁵⁻⁷⁾. 本邦での報告は1986年喜多⁸⁾の報告以来, 本症例を含め, 現在までに21例の報告がある (Table 1)⁸⁻²⁷⁾. 本症例のように術前で経尿道的もしくは大腸鏡下で生検を行い虫垂癌の診断を得ず, 術後の検体にて虫垂癌の診断を得たのは本例を含め5例であった^{10,12,20,21)}.

虫垂癌の治療法はリンパ節郭清を含めた腸管切除を行うべきとされている²⁹⁾が, 本症例では術前に癌の診断を得ず, 虫垂切除・膀胱部分切除・S状結腸切除術を施行し, 右半結腸切除は行っていない. 術後の追加治療として患者の希望もあり, 開腹よりも化学療法

Table 1. Reported cases of appendiceal cancer invading to the urinary bladder

#	Reported year	Reporter	Age	Sex	Chief complaints	Diagnostic method	Pathology	Therapy	Prognosis	Reference
1	1986	Kita	57	F	Hematuria	Cystoscope	Ad	RHC + PC	8 mo no rec	8
2	1987	Kobayashi	77	F	Suspended dust in urine	Cystoscope	MCAAd	ICR + PC	Unknown	9
3	1990	Watai	38	M	Suspended dust in urine	Cystoscope	MCAAd	ICR + PC	Unknown	10
4	1995	Ikeda	67	M	Pollakiuria	Cystoscope	MCAAd	RHC + PC	Unknown	11
5	1997	Tuchiya	68	F	Pollakiuria	Cystoscope	MCAAd	ICR + PC	Death after 56 mo	12
6	1999	Fujita	66	F	Pollakiuria	Cystoscope	MCAAd	ICR + PC	Unknown	13
7	2000	Ito	63	M	Hematuria	Cystoscope	MCAAd	ICR + TC	Unknown	14
8	2001	Mori	81	F	Hematuria	Cystoscope, colon fiber	MCAAd	ICR + PC	3 mo no rec	15
9	2002	Hamano	72	M	Pollakiuria	Abdominal CT, MRI	Ad	ICR + PC	Rec after 48 mo	16
10	2002	Ouchi	69	F	Miction pain	Cystoscope	MCAAd	Ap + PC	12 mo no rec	17
11	2003	Kataoka	76	M	Hematuria	Cystoscope	Ad	ICR + PC	Unknown	18
12	2006	Ann	52	F	Hematuria	Ba enema, abdominal CT	Ad	ICR + PC	48 mo no rec	19
13	2006	Inagawa	23	M	Hematuria	Ba enema	Ad	ICR + PC	2 mo no rec	20
14	2007	Saitou	82	M	Abdominal pain	Cystoscope, colon fiber	Ad	ICR + PC	Unknown	21
15	2007	Tabata	57	F	Miction pain	Colon fiber	Ad	ICR + PC	Unknown	22
16	2007	Bessho	80	F	Miction pain	Cystoscope	Ad	ICR + PC	Unknown	23
17	2007	Sakura	78	M	Unknown	Cystoscope	Ad	RHC + PC	12 mo no rec	24
18	2008	Yoshioka	63	F	Abdominal pain	Laparoscope	MCAAd	ICR + TC	Unknown	25
19	2009	Narushima	60	F	Miction pain	Cystoscope, abdominal CT	MCAAd	ICR + PC	Unknown	26
20	2009	Yonegami	51	M	Voiding disorder	Abdominal CT	MCAAd	ICR + PC	Unknown	27
21	2014	Kimura	37	M	Suspended dust in urine	Cystoscope	Ad	Ap + PC + Sx	58 mo no rec	

* MCAAd: mucinous cystadenocarcinoma, Ad: adenocarcinoma, ICR: ileocecal resection, RHC: right hemicolectomy, Ap: appendectomy, PC: partial cystectomy, TC: total cystectomy, Sx: sigmoidectomy.

を選択された。進行虫垂癌の術後化学療法の標準治療は確立してはいないが、fluorouracil (5-FU), cisplatin, mitomycin C が key drug と考えられている。近年、虫垂癌に対する化学療法として、大腸癌術後補助化学療法と同様のレジメンである FOLFOX (5-FU + calcium folinate + oxaliplatin) 療法が有効であるとする報告もある²⁸⁾。しかし、本症例は上記のような入院を必要とする化学療法を希望されず、tegafur-gime-racil-oteracil potassium (100 mg/日) による外来化学療法を選択した。一般的に虫垂癌は術後早期の再発も認められるため、CTなどで厳重な経過観察が必要である。今回の虫垂癌膀胱浸潤例の集計 (Table 1) で予後があきらかなものは少ないが、Ito らの虫垂癌全体の報告によれば²⁹⁾、その5年生存率は46%、さらに治癒切除に限れば61%となっており、予後は悪い。本症例のように膀胱虫垂癌の診断を得た際には、その原因として悪性疾患の可能性があることを念頭に置かなければならない。

結 語

虫垂癌の膀胱浸潤による膀胱虫垂癌の1例を報告した。本症は稀で、本症例はわが国では21例目であった。

文 献

- 1) Kellogg WA: Vesico-intestinal fistula. *Am J Sur* **41**: 135-186, 1938
- 2) 落合京一郎: 虫様突起炎による膀胱穿孔瘻。日泌尿会誌 **25**: 1003, 1936
- 3) 常盤 傑, 藤島洋介, 小原 航, ほか: 腎盂腎炎の治療を契機に診断された膀胱虫垂癌。臨泌 **64**: 161-165, 2010
- 4) Collins DC: 71,000 human appendix specimens, a final report, summarizing forty years study. *Am J Proctol* **14**: 265-281, 1963
- 5) Bischoff W and Borm N: Adenocarcinoma of the appendix penetrating the bladder. *J Urol* **123**: 123, 1980
- 6) Henry R, Bracken RB and Ayala A: Appendiceal carcinoma mimicking primary bladder carcinoma. *J Urol* **123**: 590-591, 1980
- 7) Dalton DP, Dalkin BL, Bener SF, et al.: Enterovascular fistula secondary to mucinous adenocarcinoma of appendix. *J Urol* **138**: 617-618, 1987
- 8) 喜多豊志, 石田巨宏, 吉峰修時, ほか: 膀胱浸潤を示した虫垂癌の1例。日臨外会誌 **47**: 1111-1114, 1986
- 9) 小林大志朗, 内田達也, 岡部和彦, ほか: 虫垂原発ムチン産生腺癌の膀胱浸潤の1例。日泌尿会誌 **78**: 2237, 1987
- 10) 渡井至彦, 波治武美, 富樫正樹, ほか: 膀胱浸潤を来した虫垂癌の1例。日泌尿会誌 **81**: 1115, 1990
- 11) Ikeda I, Miura T, Kondo I, et al.: Case of vesico-appendiceal fistula secondary to mucinous adenocarcinoma of the appendix. *J Urol* **153**: 1220-1221, 1995
- 12) 土屋十次, 永田高康, 川越 肇, ほか: 尿路系に浸潤し症状発現した原発性虫垂癌の2症例。日本大腸肛門病会誌 **50**: 584-593, 1997
- 13) 藤田 博, 平田昭夫, 打林忠雄, ほか: 膀胱刺激症状を契機に発見された膀胱浸潤虫垂癌の1例。泌尿紀要 **45**: 226, 1999
- 14) 伊藤友一, 桐山幸三, 谷口健次, ほか: 膀胱浸潤を来した原発性虫垂癌の1例。日消外会誌 **33**: 1238, 2000
- 15) 森 直樹, 野間雅倫, 原 恒男, ほか: 膀胱浸潤を来した虫垂癌の1例。泌尿紀要 **48**: 351-354, 2002
- 16) 浜野 聡, 内野洋志, 小島崇博, ほか: 虫垂癌膀胱浸潤の1例。泌尿器外科 **15**: 1164, 2002
- 17) 大内秀紀, 林 成彦, 渡辺岳志, ほか: 排尿時痛, 膀胱炎症状を主訴とした虫垂癌膀胱浸潤の1例。泌尿器外科 **15**: 1164, 2002
- 18) 片岡明彦, 山田俊二, 小池雅彦, ほか: 膀胱浸潤を伴った原発性虫垂癌の1例。日臨外会誌 **64**: 2932, 2003
- 19) 安 炳九, 平井 孝, 金光幸秀, ほか: 膀胱浸潤を伴う原発性虫垂癌の1切除例。日消外会誌 **39**: 503-508, 2006
- 20) 稲川 智, 石黒慎吾, 植田貴徳, ほか: 膀胱浸潤を来した若年者の原発性虫垂癌の1切除例。日臨外会誌 **67**: 913, 2006
- 21) 齋藤一幸, 奥山 隆, 平井伸幸, ほか: 虫垂癌による虫垂膀胱瘻の1例。日臨外会誌 **68**: 787, 2007
- 22) 田畑龍治, 岡本直彦, 今尾貞夫, ほか: 虫垂癌膀胱浸潤の1例。泌尿器外科 **20**: 398, 2007
- 23) 別所英治, 小口智彦, 津村秀康, ほか: 膀胱浸潤を認めた虫垂癌の1例。泌尿器外科 **20**: 592, 2007
- 24) 佐倉雄馬, 武田繁雄, 山本明広, ほか: 膀胱 Villous adenoma として発見された虫垂原発高分化型腺癌の1例。西日泌尿 **69**: 451-454, 2007
- 25) 善岡尊文, 岩井和浩, 川崎亮輔, ほか: 膀胱浸潤を伴う原発性虫垂癌の1切除例。日臨外会誌 **69**: 710, 2008
- 26) 成島雅博, 高木康治, 下地敏雄, ほか: 診断に難渋した膀胱浸潤虫垂癌の1例。泌尿紀要 **55**: 115, 2009
- 27) 米神晋作, 篠原祐樹, 吹野俊介, ほか: 尿細胞診にて診断された膀胱浸潤を伴う虫垂癌の1例。日臨外会誌 **70**: 865, 2009
- 28) 石橋 敬一郎, 傍島 潤, 岡田典倫, ほか: mFOLFOX6 療法を含む集学的治療が奏功した虫垂原発腹膜偽粘液腫の1例。癌と化療 **34**: 2046-2049, 2007
- 29) Ito H, Osteen R, Ronald B, et al.: Appendiceal adenocarcinoma: long term outcome after surgical therapy. *Dis Colon Rectum* **47**: 474-480, 2004

(Received on December 6, 2013)
(Accepted on October 29, 2014)