

原发性肛周黏液腺癌1例报道并文献复习

祝子贝, 李宇飞, 李华山

祝子贝, 李宇飞, 李华山, 中国中医科学院广安门医院肛肠科 北京市 100053

祝子贝, 在读硕士, 主要研究结直肠病的中医诊治。

作者贡献分布: 本文选题设计、病例提供及审校由李华山完成; 资料搜集及论文撰写由祝子贝与李宇飞完成。

通讯作者: 李华山, 主任医师, 100053, 北京市西城区北线阁5号, 中国中医科学院广安门医院肛肠科. lihuashan@263.net
电话: 010-88001025

收稿日期: 2015-12-09

修回日期: 2015-12-24

接受日期: 2015-12-29

在线出版日期: 2016-02-08

Perianal mucinous adenocarcinoma: A case report and literature review

Zi-Bei Zhu, Yu-Fei Li, Hua-Shan Li

Zi-Bei Zhu, Yu-Fei Li, Hua-Shan Li, Department of Anorectal Medicine, Guang'anmen Hospital, China Academy of Chinese Medical Sciences, Beijing 100053, China

Correspondence to: Hua-Shan Li, Chief Physician, Department of Anorectal Medicine, Guang'anmen Hospital, China Academy of Chinese Medical Sciences, 5 Beixian'ge, Beijing 100053, China. lihuashan@263.net

Received: 2015-12-09

Revised: 2015-12-24

Accepted: 2015-12-29

Published online: 2016-02-08

Abstract

Perianal mucinous adenocarcinoma has been rarely reported. Here we describe a case of perianal mucinous adenocarcinoma in a male patient, who was referred to our hospital

because of "mixed hemorrhoid and perianal mass". During the operation, the tumor was found to be grid-like and filled with jelly-like substance. Histological examination revealed a perianal mucinous adenocarcinoma. An abdominoperineal resection was performed. The patient healed well after operation, and he was discharged after postoperative chemotherapy. Since perianal mucinous adenocarcinoma usually has no specific clinical symptoms, it is difficult to diagnose early. Perianal mucinous adenocarcinoma has a low survival rate and poor prognosis, and clinicians should raise their awareness of this disease.

© 2016 Baishideng Publishing Group Inc. All rights reserved.

Key Words: Anal carcinoma; Mucinous adenocarcinoma; Treatment; Literature review

Zhu ZB, Li YF, Li HS. Perianal mucinous adenocarcinoma: A case report and literature review. *Shijie Huaren Xiaohua Zazhi* 2016; 24(4): 653-656 URL: <http://www.wjgnet.com/1009-3079/24/653.asp> DOI: <http://dx.doi.org/10.11569/wcjd.v24.i4.653>

摘要

原发性肛周黏液腺癌临床较为罕见。现报道1例男性患者, 由门诊以“混合痔、肛周肿物”收入院, 于术中发现肿物呈分格状, 果冻样内容物填充, 术后病理回报: (肛旁)送检标本内见黏液腺癌。行肛管直肠癌腹会阴联合切除术(Miles术), 术后恢复尚可, 行一周术后化疗方案后出院, 继续随访中。由于原发性肛周黏液腺癌初期大多无典型临床症状, 早期诊断较为困难。该病生存率低、

背景资料

原发性肛周黏液腺癌临床较为罕见, 该病发病隐匿, 初期临床表现无特异性, 易与复杂性肛瘘及肛周良性肿物等疾病混淆, 造成早期诊断困难, 应引起广大医护人员重视。

同行评议者

孟庆成, 副教授, 主任医师, 北京大学医学部, 航天中心医院普通外科; 邵万金, 主任医师, 江苏省中医院肛肠外科

■ 研究前沿

肛周黏液腺癌的病因尚不明确, 研究显示可能与肛导管或肛腺引流不畅导致慢性炎症刺激上皮细胞恶变的结果有关, 而且该病治疗方式存在争议, 针对该病的病因学及治疗学等方面尚需临床研究进一步探索。

预后不佳, 应引起广大医护人员重视。

© 2016年版权归百世登出版集团有限公司所有。

关键词: 肛周肿瘤; 黏液腺癌; 诊疗; 文献复习

核心提示: 原发性肛周黏液腺癌是一种少见的肛门周围恶性肿瘤, 肠炎、肛瘘病史、糖尿病是该病的危险因素, 其生长相对缓慢, 转移较少, 术前、术后辅以化疗和/或放疗, 对疾病预后有一定帮助。早期诊断和早期治疗是决定该病患者预后的关键。

祝子贝, 李宇飞, 李华山. 原发性肛周黏液腺癌1例报道并文献复习. 世界华人消化杂志 2016; 24(4): 653-656 URL: <http://www.wjgnet.com/1009-3079/24/653.asp> DOI: <http://dx.doi.org/10.11569/wcjd.v24.i4.653>

0 引言

原发性肛周黏液腺癌是一种罕见的肛周恶性肿瘤, 1934年Rosser^[1]首次描述了一组7例慢性肛瘘合并癌的病例, 近年来间断有该疾病的小样本报道。由于该病缺乏典型的临床表现, 故常被临床医师所忽略, 而造成误诊、漏诊延误治疗。现结合中国中医科学院广安门医院近日收治1例该病患者, 报道并分析如下。

1 病例报告

男, 72岁, 主因“肛门肿物脱出伴疼痛20年, 加重半月”入院。患者20年前无明显诱因出现肛门肿物脱出, 便后尚可自行还纳, 肛门口疼痛, 偶有便血, 色鲜红, 量不多, 1995-03于中国人民解放军总医院手术治疗, 诸症状缓解; 后肛门肿物脱出间断发作, 未予特殊治疗。半月前无明显诱因出现肛门肿物脱出, 便后不能还纳, 肛门口疼痛, 偶有便血, 色鲜红, 量不多, 2015-02-27于广安门医院肛肠科门诊就诊。既往高血压、糖尿病、左眼置换术后病史。入院检查: (膀胱截石位)视诊: 7、11点位肛缘可见皮肤隆起, 无充血水肿。指诊: 肛门括约肌功能无异常。3点位可及硬结, 触痛明显; 齿线上7、11点分别可及柔软光滑包块。指套无染血。镜检: 齿线上黏膜色红, 7、11点齿线上下可见黏膜皮肤隆起, 连成一体。入院诊断为混合痔、肛周肿物。心电图无异常, 腹部超声示: 左肾钙化灶, 血常规、生化全项、凝血功能无明显异常, 肿瘤标志物均在正常范围内[癌胚抗原(carcino-embryonic

■ 相关报道

Anthony等回顾性地分析了4例肛周黏液腺癌的病例, 3例患者于诊断后2-48 mo相继死于复发, 第4例患者腹会阴联合切除术后结合放化疗, 无病生存12 mo, 认为该病预后较差。该病病例数少, 预后方面仍需大量数据检验。

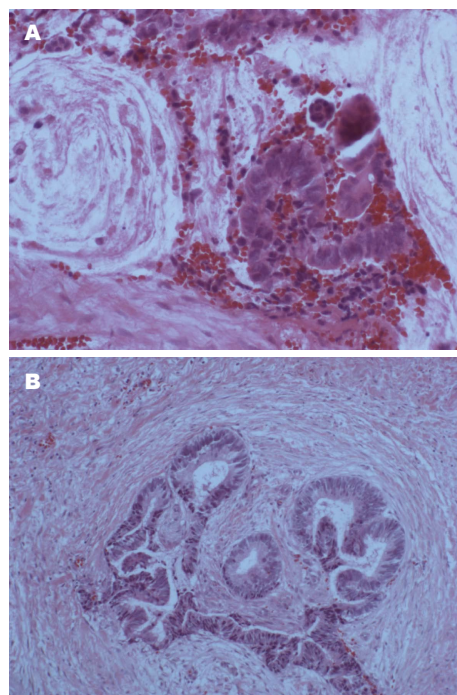


图1 肛周黏液腺癌病理组织。A: 200倍镜下观察可见周围柱状细胞包绕黏液池。B: 100倍镜下可见较多黏液池。

antigen, CEA)为1.04 ng/mL], 未行盆腔核磁共振及CT扫描, 于2015-03-03行混合痔外剥内扎术及肛周肿物切除活检术, 3点位肿物隆起处锐性切开, 上至齿线上0.5 cm, 可见肿物呈分格状, 果冻样内容物填充, 清除创口内全部腐败组织及内容物, 肿物组织及内容物送病理。术后病理结果回报: (痔核组织)送检标本病变符合混合痔, (肛旁)送检标本内见黏液腺癌, (肿物内容物)送检标本镜下见多量黏液, 其中见极少许漂浮的腺上皮(图1), 不能除外肿瘤, 请结合临床。进一步完善肿瘤相关检查, 并行肛管直肠癌经腹会阴联合切除术(Miles术), 术后予XELOX化疗方案, 恢复良好, 继续随访中。

2 讨论

原发性肛周黏液腺癌是一种少见的肛门周围恶性肿瘤, 该病仅占肛周肿瘤的3%-19%^[2], 肠炎、肛瘘病史、糖尿病是该病的危险因素^[3], 年龄间无明显差异, 男性患病率高于女性^[4]。

2.1 病变特征及症状 肛周黏液腺癌起源于肛导管或肛腺, 是小凹引流不畅导致慢性炎症刺激上皮细胞恶变的结果, 但也有学者^[5-9]认为可能是由于慢性溃疡性结肠炎、活动性克罗恩病、慢性瘻道诱发了恶性转化, 是一种分化良好的恶性肿瘤。其生长相对缓慢, 病程可长

达数十年, 具有局部生长的特点. 切除不彻底时易复发, 但该病转移较少, 可见腹股沟淋巴结转移^[10]. 本病初期大多无典型临床症状, 常以肛痿、肛周脓肿等就诊, 病史较长者可表现为长期慢性复杂性肛痿, 复发性肛周脓肿, 臀部肿痛或广泛溃疡形成, 而出现大量透明胶冻状或灰白黏冻状分泌物, 肛周皮肤破溃后可形成类癌型增生, 但患者可无大便习惯改变、腹痛、便血等肠道占位征象.

2.2 诊断 本病确诊须依靠病理诊断. 大体病理标本一般分为隆起型、溃疡型和肛痿型三种, 呈管外型生长, 一般不侵犯直肠和肛门. 该例患者符合隆起型表现, 即肛周疼痛或无痛性肿块, 位置固定, 边界不清. 本病的组织病理肿瘤细胞分化良好, 可见明显导管结构, 大量的黏液蛋白形成黏液池, 直肠周围软组织有广泛浸润^[11,12]. 该病常伴有肛痿、肛周脓肿等肛周疾病, 周围组织易形成瘢痕纤维化, 活检取材时过于表浅, 会使组织学检查只显示炎症改变, 从而产生误诊. 当肛周疾病的病理标本中发现游离的黏蛋白小体存在于肉芽组织内时, 往往有助于该病的早期诊断. 对于病史10年以上, 反复手术或术后伤口愈合不良的肛痿患者建议行扩大范围活检. 对于肛周黏液腺癌的影像学检查, 腔内彩超、CT、MRI等检查也有助于诊断. MRI优于CT, MRI能更好地显示病变毗邻关系及侵犯范围, 表现为长T1长T2信号, T2压脂像上多为高信号, 增强后实性部分明显强化^[13].

2.3 治疗及预后 有的学者^[3,14]认为癌肿生长缓慢, 淋巴转移较少, 可以行局部切除. 笔者建议对于局部切除要慎重, 以广泛腹会阴联合根治术更适宜, 术中应尽量将坐骨直肠窝及肿瘤表面相应的皮肤切除, 直肠切除的范围无特定要求. 腹股沟淋巴结有转移者宜同时行腹股沟淋巴结清扫术.

本病预后情况尚不确切, 有待临床检验. Anthony等^[15]回顾性地分析了4例肛周黏液腺癌的病例, 3例患者于诊断后2-48 mo相继死于复发, 第4例患者腹会阴联合切除术后结合放化疗, 无病生存12 mo. 他认为该病预后受制于早期诊断的延误而较差. Prioleau等^[16]曾对患者的腹股沟淋巴结转移灶行放疗并结合5-氟尿嘧啶全身化疗, 未取得明显效果. Nishimura等^[17]采用术前、术中、术后三阶段放射治疗, 患者耐受良好, 治疗生存期达7年.

该病的预后受限于病例少、随访难、报道少而难以进行准确评估. Okada等^[18]认为本病对放化疗不敏感, 并且预后较非黏液腺癌差. Schaffzin等^[6]指出3年以上生存期即可认为治疗有效. 除早期外, 有学者^[7,14,19]认为术前、术后辅以化疗和/或放疗, 对疾病预后有一定帮助. 因此对本病进行积极合理的综合治疗, 大多可取得较好效果.

肛周黏液腺癌因临床罕见, 初诊多被误诊为肛周脓肿或皮脂腺瘤等良性病变而致延误病情, 早期诊断和早期治疗是决定该病患者预后的关键, 临床医生应提高警惕、注意鉴别.

3 参考文献

- Rosser C. The relation of fistula-in-ano to cancer of the anal canal. *Am Proct Soc* 1934; 35: 65-71
- Ong J, Jit-Fong L, Ming-Hian K, Boon-Swee O, Kok-Sun H, Eu KW. Perianal mucinous adenocarcinoma arising from chronic anorectal fistulae: a review from a single institution. *Tech Coloproctol* 2007; 11: 34-38 [PMID: 17357864 DOI: 10.1007/s10151-007-0322-5]
- Ilbawi AM, Simianu VV, Millie M, Soriano P. Wide local excision of perianal mucinous adenocarcinoma. *J Clin Oncol* 2015; 33: e16-e18 [PMID: 24590647 DOI: 10.1016/j.jco.2012.05.017]
- Sierra EM, Villanueva Saenz E, Martínez PH, Rocha JR. Mucinous adenocarcinoma associated with fistula in ano: report of a case. *Tech Coloproctol* 2006; 10: 51-53 [PMID: 16528482 DOI: 10.1007/s10151-006-0251-8]
- Matsuo K, Chi DS, Eno ML, Im DD, Rosenshein NB. Vulvar mucinous adenocarcinoma associated with Crohn's disease: report of two cases. *Gynecol Obstet Invest* 2009; 68: 276-278 [PMID: 19828998 DOI: 10.1159/000245742]
- Schaffzin DM, Stahl TJ, Smith LE. Perianal mucinous adenocarcinoma: unusual case presentations and review of the literature. *Am Surg* 2003; 69: 166-169 [PMID: 12641361]
- Yang BL, Shao WJ, Sun GD, Chen YQ, Huang JC. Perianal mucinous adenocarcinoma arising from chronic anorectal fistulae: a review from single institution. *Int J Colorectal Dis* 2009; 24: 1001-1006 [PMID: 19205706 DOI: 10.1007/s00384-009-0657-7]
- Sen M, Ozdemir O, Turan M, Arici S, Yildiz F, Koksall B, Goze F. Epigenetic inactivation of tumor suppressor SFRP2 and point mutation in KRAS proto-oncogene in fistula-associated mucinous type anal adenocarcinoma: report of two cases. *Intern Med* 2010; 49: 1637-1640 [PMID: 20686305 DOI: 10.2169/internalmedicine.49.3249]
- Winkler R, Wittmer A, Heusermann U. [Cancer and Crohn's disease]. *Z Gastroenterol* 2002; 40: 569-576 [PMID: 12297980]
- Santos MD, Nogueira C, Lopes C. Mucinous adenocarcinoma arising in chronic perianal fistula: good results with neoadjuvant chemoradiotherapy followed by surgery. *Case Rep Surg* 2014; 2014: 386150 [PMID: 25506029 DOI: 10.1155/2014/386150]
- Navarra G, Ascanelli S, Turini A, Lanza G, Gafà R,

■创新盘点

本文通过详实的临床报道, 说明肛周黏液腺癌的临床表现、病理特点、病情变化及治疗方法等, 并综合国内外文献阐明该病研究进展及常见治疗方式, 对该病的临床诊治及进一步深入研究有一定的意义.

■应用要点

本文通过较为完善的临床报道说明肛周黏液腺癌的诊疗过程, 并综合国内外文献说明目前该病研究进展, 不仅为该病临床诊治提供依据, 亦为针对该病的进一步深入研究打下基础.

同行评价

原发性肛周黏液腺癌是一种罕见的肛周恶性肿瘤, 此文从临床的病例进行报道、分析, 给临床医生以启示, 值得借鉴, 避免误诊和漏诊方面有较大的临床意义。

- 12 Tonini G. Mucinous adenocarcinoma in chronic anorectal fistula. *Chir Ital* 1999; 51: 413-416 [PMID: 10738618]
- 13 Perkowski PE, Sorrells DL, Evans JT, Nopajaroonsri C, Johnson LW. Anal duct carcinoma: case report and review of the literature. *Am Surg* 2000; 66: 1149-1152 [PMID: 11149587]
- 14 薛建秀, 王继萍, 孙默, 王景宇, 张磊. 肛周及臀部黏液腺癌伴复杂肛瘘1例. *中国医学影像技术* 2014; 30: 1304
- 15 Ohta R, Sekikawa K, Goto M, Narita K, Takahashi Y, Ikeda H, Oneyama M, Hirata Y, Nakayama M, Shimoda Y, Sato S. A case of perianal mucinous adenocarcinoma arising from an anorectal fistula successfully resected after preoperative radiotherapy. *Case Rep Gastroenterol* 2013; 7: 219-223 [PMID: 23741210 DOI: 10.1159/000351830]
- 16 Anthony T, Simmang C, Lee EL, Turnage RH. Perianal mucinous adenocarcinoma. *J Surg Oncol* 1997; 64: 218-221 [PMID: 9121153]
- 17 Prioleau PG, Allen MS, Roberts T. Perianal mucinous adenocarcinoma. *Cancer* 1977; 39: 1295-1299 [PMID: 199346]
- 18 Nishimura T, Nozue M, Suzuki K, Imai M, Suzuki S, Sakahara H, Nakamura T, Sugimura H. Perianal mucinous carcinoma successfully treated with a combination of external beam radiotherapy and high dose rate interstitial brachytherapy. *Br J Radiol* 2000; 73: 661-664 [PMID: 10911792]
- 19 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 [PMID: 18516539 DOI: 10.1007/s00595-007-3651-0]
- 20 Shin US, Yu CS, Kim JH, Kim TW, Lim SB, Yoon SN, Yoon YS, Kim CW, Kim JC. Mucinous rectal cancer: effectiveness of preoperative chemoradiotherapy and prognosis. *Ann Surg Oncol* 2011; 18: 2232-2239 [PMID: 21347780 DOI: 10.1245/s10434-011-1612-8]

编辑: 郭鹏 电编: 闫晋利





Published by **Baishideng Publishing Group Inc**
8226 Regency Drive, Pleasanton,
CA 94588, USA
Fax: +1-925-223-8242
Telephone: +1-925-223-8243
E-mail: bpgoffice@wjgnet.com
<http://www.wjgnet.com>



ISSN 1009-3079

