

<症例報告>

大殿筋弁を用いて再建した仙骨浸潤を伴う熱傷癒痕癌の1例

石井 陸*, 前田 拓*, 石川耕資*, 山尾 健*****, 山本有平*, 林 利彦***

Key Words : 熱傷, 癒痕癌, マージョリン潰瘍, 仙骨, 大殿筋弁

序 文

熱傷癒痕は潰瘍をきたしやすく、悪性腫瘍を生じることがある。その経過は数十年と一般的に緩徐であるが、まれに骨に浸潤するまで進行することもある¹⁾。今回われわれは、幼少期に受傷した熱傷に伴う仙骨部熱傷癒痕に、数十年経過したのちに仙骨浸潤を伴う有棘細胞癌を生じたため、仙骨合併切除および大殿筋弁により治療した1例を経験した。熱傷癒痕癌が仙骨に浸潤した症例はきわめてまれであるため、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：65歳，女性。

主訴：仙骨部の難治性潰瘍に生じた有棘細胞癌。

既往歴：広範囲熱傷（7歳時）。

現病歴：7歳時に下半身を中心に広範囲熱傷を受傷し加療された。受傷後、仙骨部など熱傷受傷部位に癒痕を生じた。50歳時に左大転子部、55歳時に右大腿部の熱傷癒痕部に潰瘍を認め、前医で部分切除生検を行われたが悪性所見はなく、保存的加療により潰瘍は治癒した。当科受診の7ヵ月前より左大転子部に潰瘍の再発を、左腰部と仙骨部に新規の潰瘍の出現を認めた。仙骨部潰瘍は75×70mm大であり、前医で部分切除生検を行われたが、3ヵ所とも悪性所見は認めなかった。保存的加療により左大転子部と左腰部の潰瘍は治癒したが、仙骨部潰瘍の大きさに著変はなく、半年間にわたり治癒しなかったため、前医で部分切除生検を行われ、有棘細胞癌、側方および深部断端陽性と診断された（図1）。治療目的に北海道大学病院形成外科へ紹介された。

初診時所見：下半身から腰部にかけて熱傷癒痕を認めた。背部、左腰部、左大転子部の癒痕は潰瘍を伴っ

ていた。仙骨部に85×80mm大の、悪臭と壊死組織を伴う潰瘍を認めた（図2）。触診上、両鼠径リンパ節の腫大は認めなかった。

血液検査所見：白血球数7,000/μl, CRP 6.51mg/dl, 血清総蛋白6.3g/dl, アルブミン2.1g/dl, SCC抗原1.2ng/mlであった。

画像所見：造影CTでは、仙骨部の軟部組織に濃度上昇域を認めた。仙骨との境界は不明瞭であり、第4仙椎から尾骨に及ぶ破壊像を認めた。直腸への浸潤や遠隔転移の所見は認めなかった（図3）。造影MRIでは、仙骨部軟部組織にT1強調像で低信号を、T2強調像で軽度高信号を示し、不均一な造影効果を示す領域を認め、第4仙椎から尾骨に及ぶ破壊像を認めた（図4）。PET-CTでは、仙骨部に高集積を認めたが、リンパ節転移や遠隔転移の所見は認めなかった。

病理組織学的所見（前医での部分切除生検の標本）：癒痕様の線維増生を背景に、不全角化性の角質増生と表皮肥厚に加え、不規則な胞巣状の間質浸潤を認めた。有棘細胞癌、癒痕癌と診断した。臨床像よりcT4aN0M0, Stage IV Aと診断した。

経過：背部、左腰部、左大転子部の癒痕をそれぞれ2ヵ所ずつ生検したが、悪性所見は認めなかった。仙骨浸潤のため第2仙椎での仙骨離断の方針としたが、術中出血が危惧されたため、手術の4日前に放射線科にて正中仙骨動脈塞栓術が行われた。また仙骨離断に伴い膀胱直腸障害を生じるため、人工肛門造設も同時に行う方針とした。

初診より2ヵ月後に消化器外科および整形外科と共同で腫瘍切除、仙骨離断、右大殿筋弁、分層植皮、人工肛門造設術を施行した。患者を碎石位とし、消化器外科が腹腔鏡下に直腸を仙骨より剝離した。腹腔内および直腸と仙骨の剝離層に腫瘍の浸潤を認めなかった。その後、S状結腸双孔式人工肛門を造設した。続

* 北海道大学 大学院医学研究院・医学院 形成外科学教室 ** 旭川厚生病院形成外科 *** 旭川医科大学形成外科
2021年9月10日受領
2021年10月4日掲載決定

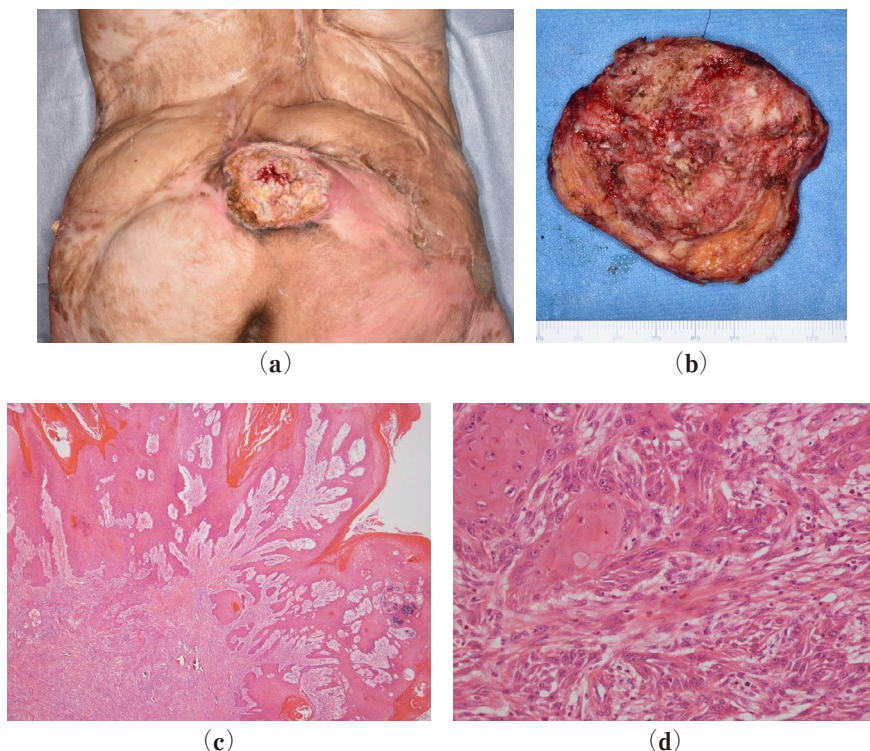


図1 前医での部分切除生検時の所見

- (a) 仙骨部に出血を伴う75×70mm大の潰瘍を認める。
- (b) 切除した検体の裏面。
- (c) HE染色(20倍)。不規則に表皮が肥厚し、胞巣状に間質内で増生している。表皮突起の下方伸長を認める。
- (d) HE染色(200倍)。細胞が不規則に増生、浸潤しており、(c)とあわせ有棘細胞癌の所見である。



図2 当科初診時の所見

仙骨部に85×80mm大の、悪臭と壊死組織を伴う潰瘍を認める。背部に熱傷瘢痕を認める。

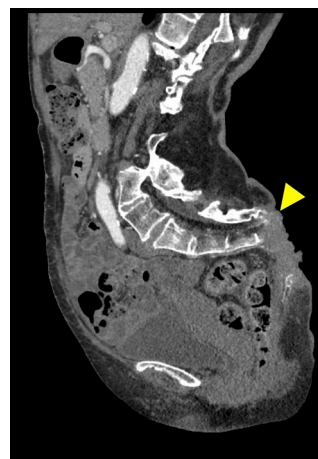


図3 造影CT所見(矢状断)

仙骨部に仙骨との境界不明瞭な軟部組織の濃度上昇域を認める。第4仙椎(黄矢頭)から尾骨に及ぶ破壊像を認める。

いて腹臥位に体位を変換し、腫瘍辺縁から2cmの側方マージンをおいて皮膚切開を行った(図5a)。右殿部の瘢痕に沿って皮膚を切開し、下殿動脈と上殿動脈を確保したうえで、大殿筋弁を末梢側より挙上し

た(図5b)。左大殿筋と仙骨の剝離を行い、梨状筋の一部を切除した。第2仙椎以下で硬膜を結紮および切離し、第2仙椎高位で腫瘍と一塊にして仙骨を離断した(図5c)。仙骨離断に伴い生じた後腹膜欠損を縫合

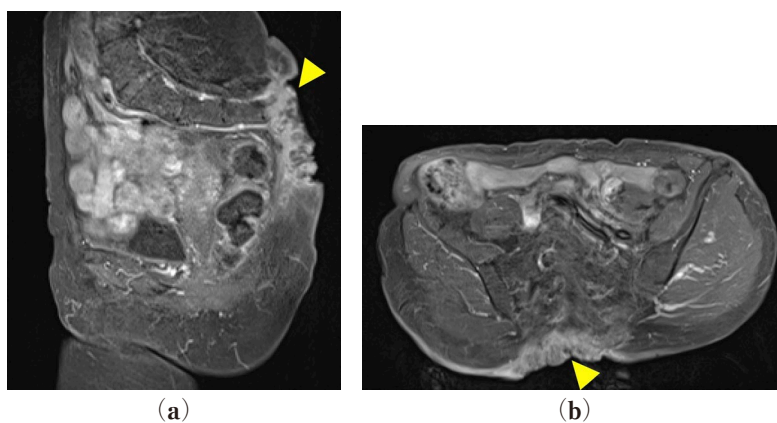


図4 造影MRI所見 (T1強調像)

(a) 矢状断 (b) 軸位断

第4仙椎 (黄矢頭) から尾骨の破壊像を認める。

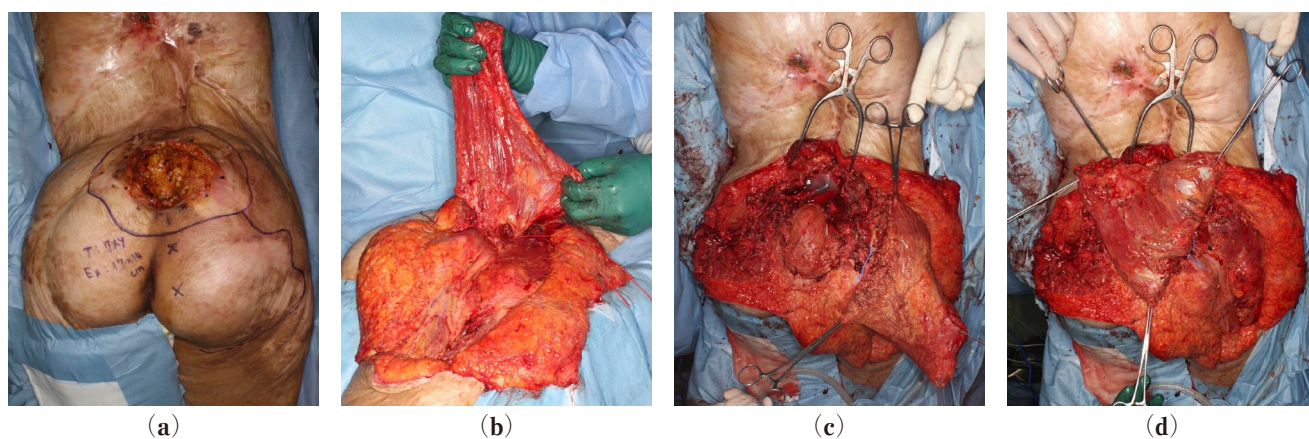


図5 手術所見

(a) 腫瘍辺縁から2cmの側方マージンとした。右殿部の瘻痕に沿って皮膚切開線をデザインした。

(b) 上・下殿動脈を確保したうえで、大殿筋弁を末梢より挙上した。

(c) 第2仙椎高位で腫瘍と一塊にして仙骨を離断した。

(d) 大殿筋弁を反転し、欠損部へ充填した。

し、大殿筋弁を反転して欠損部に充填し、下床と縫合した(図5d)。熱傷瘻痕のない右大腿から分層採皮し、1.5倍網状植皮として筋弁上に移植した。術中出血量は2,650mlであった。摘出標本上、77×60mm大の潰瘍を認めた(図6a)。病理組織学的には、瘻痕様の線維増生と高度の角質堆積を伴う腫瘍で、表皮突起が不規則に下方へ伸長し、真皮以深では角化を伴う不規則形の胞巣構造をとって浸潤する高～中分化型の有棘細胞癌の像であった。Tumor thicknessは36mmで、最深部では仙骨への浸潤が確認されpT4aと診断した(図6b～d)。側方および深部断端は陰性であった。

術後14日間はフローティングベッド上で管理した。筋弁下に血腫が出現し一部に潰瘍を生じたが、筋弁および植皮の生着は良好であった。術後11ヵ月現在、局所再発の所見はなく、植皮部は保湿剤の自己塗布に

より潰瘍の発生を認めない(図7a)。造影CTでは、リンパ節転移の所見を認めない(図7b)。排尿障害を認めるが、自己導尿で対応している。杖などを用いずに自力歩行可能であり、自転車も乗車可能である。

考 察

熱傷瘻痕を含む瘻痕組織の悪性化は1828年にMarjolinが報告し、現在ではMarjolin's ulcerとして知られている²⁾。熱傷においては二次的に治癒した瘻痕に生じ、その発生率は0.7～2%程度と報告される³⁾。癌種としては、有棘細胞癌(71%)、基底細胞癌(12%)、悪性黒色腫(6%)、肉腫(5%)などがあげられ⁴⁾、瘻痕を生じてから30～50年以上経過してから悪性化することが多い^{3,5-7)}。瘻痕が悪性化する機序は完全には解明されていないが、慢性的な炎症

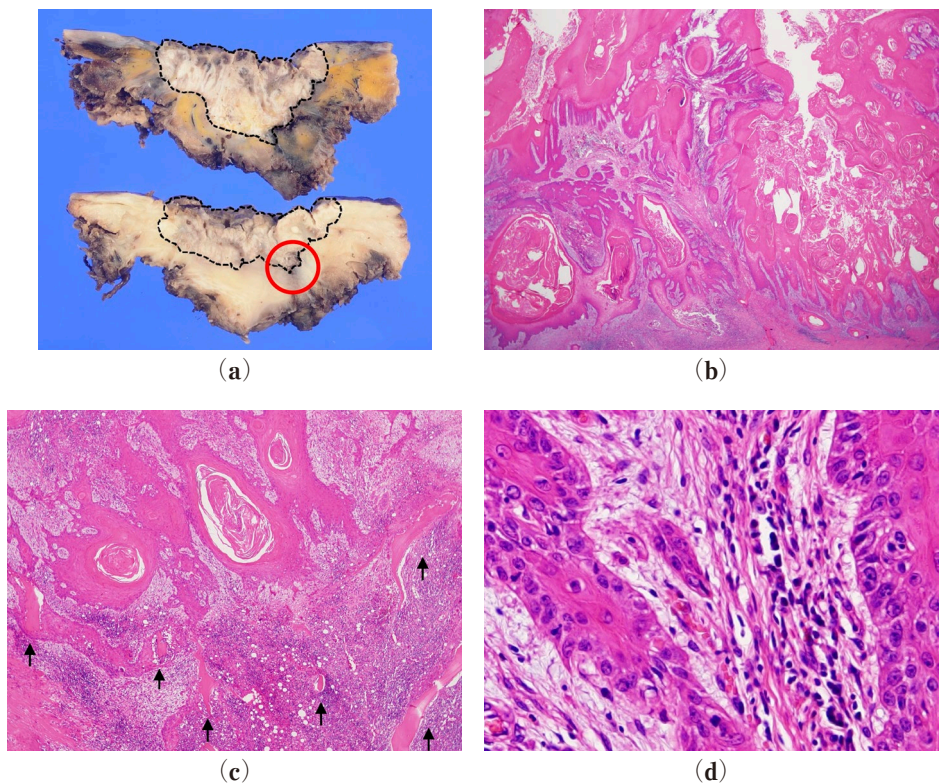


図6 病理組織学的所見
 (a) 標本の剖面。破線は腫瘍の辺縁を示す。Tumor thickness は36mm であり、赤丸部で仙骨への浸潤を認める。
 (b) HE 染色 (12.5 倍)。過角化、表皮突起の下方伸長、不規則形胞巣状の浸潤性増殖を示す腫瘍を認める。
 (c) HE 染色 (40 倍)。最深部では腫瘍の仙骨への浸潤 (黒矢印：仙骨骨梁) を認める。
 (d) HE 染色 (200 倍)。細胞異型は比較的軽度だが、浸潤部では核腫大、核小体の顕在化、極性の乱れを認める。

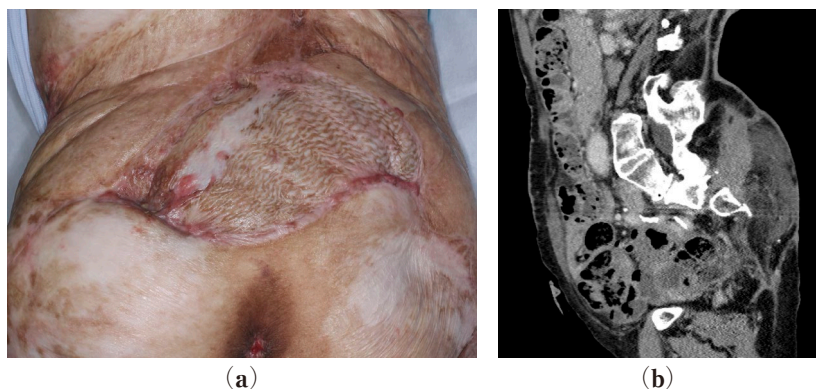


図7 術後11ヵ月の所見
 (a) 腫瘍の局所再発および植皮部の潰瘍を認めない。
 (b) 造影CT所見 (矢状断)：腫瘍の局所再発を認めない。

や刺激によるもの、損傷後の組織が継続的に発癌物質に曝露されることによるもの、瘢痕組織の貧弱な血管形成による免疫能の低下などがあげられる⁴⁾。予後に関しては、一般的な有棘細胞癌と比べて不良であり⁶⁾、骨に浸潤した例では血行性転移をきたしやす

く、特に不良とされる⁵⁾。リンパ節転移率は有棘細胞癌全体では2～7.9%との報告があるが^{8,9)}、熱傷瘢痕から発生した有棘細胞癌では30%とされる¹⁰⁾。一般的に仙骨部皮膚悪性腫瘍は、所属リンパ節である鼠径リンパ節から外腸骨リンパ節もしくは閉鎖リンパ節を

經由し、骨リンパ節へ至る経路でリンパ行性に転移する。しかし、上・下殿動脈や坐骨神経周囲に形成される neurovascular lymphatic space と呼ばれる間隙が、内腸骨リンパ節転移をきたす副次的な経路になりうることを示唆されている¹¹⁾。本症例ではセンチネルリンパ節生検も考慮されたが、術前画像検査においていずれのリンパ節転移も認めず、また体位変換が必須で手術時間が長時間になり患者への侵襲が増すことから行わなかった。しかしながら術後にリンパ節転移を生じる可能性は高いため、定期的に画像検査を行い経過観察している。

本症例では幼少期に熱傷を受傷し、瘢痕治癒した部位に潰瘍形成を繰り返した結果として、60年近く経過して有棘細胞癌を生じており、熱傷瘢痕癌と考えられる。仙骨部に生じた潰瘍から悪性腫瘍を生じ、それが仙骨にまで浸潤したという報告は、渉猟し得た限りでは毛巣洞¹²⁾、化膿性汗腺炎¹³⁾、仙骨部褥瘡¹⁴⁾によるものがあるが、熱傷瘢痕に伴うものはなくきわめてまれである。一般的に熱傷瘢痕癌の進行は緩徐と考えられるが、発症からの経過が長期に及ぶ場合には深部へ進行する可能性もあり、注意が必要である。本症例では発症15年前より左大転子部と右大腿部に潰瘍が出現し、複数回の生検を行われているが、いずれも悪性所見は認められなかった。しかし、7ヵ月前に出現した仙骨部潰瘍は、初回の部分切除生検では悪性所見は認められなかったものの、病変の大部分を採取した部分切除生検では有棘細胞癌と診断され、より短い間隔での生検や複数箇所での生検を積極的に施行すべきであったと考える。

有棘細胞癌の側方マージンは、皮膚悪性腫瘍診療ガイドライン第3版有棘細胞癌診療ガイドライン2020では6～10mm、NCCNガイドラインVer.1 2020 SCCでは9mm以上¹⁵⁾、Marjolin's ulcerの側方マージンは2～4cmが推奨されている³⁾。本症例では骨浸潤が明らかであり、十分なマージンが必要であること、2cm以上のマージンを設定すると大殿筋弁での被覆が困難になり、また栄養血管である上殿動脈を損傷する可能性があることから、最終的な側方マージンは2cmとした。

本症例は腫瘍が85×80mmと大きく、また仙骨合併切除も要したため、広範囲に及ぶ術後欠損を生じた。一般的に腰背部の再建では、殿部の皮弁、腹直筋弁、広背筋弁が用いられるが¹⁶⁾、仙骨部の再建には大殿筋弁が選択されうる^{5,17)}。

本症例と類似した欠損および再建法となる疾患としては、仙骨脊索腫などの原発性仙骨腫瘍がある。これらにおける仙骨切除に対する再建方法としては、有茎

腹直筋皮弁¹⁸⁾、有茎大殿筋弁¹⁹⁾、遊離広背筋弁¹⁶⁾などがある。本症例では膀胱直腸障害は必発であり、また直腸浸潤をきたしていた可能性から人工肛門造設を行う方針であったため、有茎腹直筋皮弁の選択は困難であった。遊離広背筋弁であれば、手術時間が長くなり患者への負担が増すことや、吻合血管としてあげられる上殿動脈や下殿動脈が、術後にフローティングベッドで管理するとはいえ、圧迫によって吻合部血管閉塞に至る可能性が懸念された。また本症例では仙骨の切除に伴う後腹膜欠損により、感染や瘻孔形成の可能性があった。有茎大殿筋弁であれば血流が豊富で安定した筋弁を欠損部に充填可能であり、そのような術後合併症が起こる可能性は低くなると考えられた。大殿筋は歩行にかかわる筋肉であり、大殿筋弁を用いることで階段昇降の際などに歩行障害をきたす可能性があった。しかし、大殿筋の障害は時間経過とともに大内転筋やハムストリングの肥大で代償されるため、歩行可能な患者であってもこの筋弁を用いることは問題ないと判断した²⁰⁾。本症例でも術後11ヵ月の時点で平地の自力歩行と階段昇降が可能であり、また自転車も乗車できることから、大殿筋の犠牲は他の筋肉で代償可能であったといえる。

結 語

熱傷瘢痕に発生した骨に達する有棘細胞癌に対して仙骨合併切除を行い、有茎大殿筋弁による再建により良好な結果を得た1例を経験した。熱傷瘢痕に伴う潰瘍は常に悪性を念頭に置きつつ、経過のなかで難治化する場合などは一度の生検で悪性細胞が検出されずとも、繰り返し生検を行うことが重要である。また後腹膜に通じる仙骨合併切除による広範な欠損に対しては、機能的損失のリスクは決して低くはないが、その他の再建方法が選択できない場合には、大殿筋弁は有用な方法の一つと考えられた。

本論文について他者との利益相反はない。

謝 辞

手術にご協力いただきました北海道大学病院消化器外科Iの本間重紀先生、整形外科の岩田玲先生、病理所見に関してご指導いただきました病理診断科の清水亜衣先生に厚く御礼申し上げます。

文 献

- 1) Onah I, Okwor B, Onuigbo WI : Penetrating scalp Marjolin's ulcer involving bone and dura mater

- in a Nigerian hospital: case report and literature review. *Burns*, 2010; 36: e39-43.
- 2) Da Costa JC : Carcinomatous changes in an area of chronic ulceration, or Marjolin's ulcer. *Ann Surg*, 1903; 37: 496-502.
 - 3) Saaiq M, Ashraf B : Marjolin's ulcers in the post-burned lesions and scars. *World J Clin Cases*, 2014; 2: 507-14.
 - 4) Kowal-Vern A , Criswell BK : Burn scar neoplasms: a literature review and statistical analysis. *Burns*, 2005; 31: 403-13.
 - 5) 本間憲一, 杉原平樹, 吉田哲憲, ほか : 褥瘡を発生母地とした有棘細胞癌の5例 - 自験例と本邦報告例の集計 -. *日形会誌*, 1990; 10: 636-48.
 - 6) 和田秀樹, 船津天生 : 熱傷癩痕癌 - 自験例59例を中心に -. *熱傷*, 1984; 10: 105-12.
 - 7) 木村 中, 吉田哲憲, 小山明彦, ほか : われわれの経験した熱傷癩痕癌. *熱傷*, 1995; 21: 225-31.
 - 8) Tejera-Vaquerizo A, Garcia-Doval I, Llombart B, et al : Systematic review of the prevalence of nodal metastases and the prognostic utility of sentinel lymph node biopsy in cutaneous squamous cell carcinoma. *J Dermatol*, 2018; 45: 781-90.
 - 9) Thompson AK, Kelley BF, Prokop LJ, et al : Risk factors for cutaneous squamous cell carcinoma recurrence, metastasis, and disease-specific death: A systematic review and meta-analysis. *JAMA Dermatol*, 2016; 152: 419-28.
 - 10) Møller R, Reymann F, Hou-Jensen K : Metastases in dermatological patients with squamous cell carcinoma. *Arch Dermatol*, 1979; 115: 703-5.
 - 11) Wallace S, Jackson L, Dodd GD, et al : Lymphatic dynamics in certain abnormal states. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med*, 1964; 91: 1187-206.
 - 12) Nunes LF, Castro Neto AK, Vasconcelos RA, et al : Carcinomatous degeneration of pilonidal cyst with sacrum destruction and invasion of the rectum. *An Bras Dermatol*, 2013; 88: 59-62.
 - 13) Buchanan LE, Campbell CA : Complex reconstruction of a pelvic Marjolin's ulcer arising from hidradenitis suppurativa. *Plast Reconstr Surg Glob Open*, 2019; 7: e2054.
 - 14) Knudsen MA, Biering-Sorensen F : Development of Marjolin's ulcer following successful surgical treatment of chronic sacral pressure sore. *Spinal Cord*, 2008; 46: 239-40.
 - 15) Organization NCCN : NCCN Guidelines Version 1.2021 Squamous Cell Skin Cancer. https://www.nccn.org/professionals/physician_gls/pdf/squamouspdf, 2021.9.10.
 - 16) Asaad M, Rajesh A, Wahood W, et al : Flap reconstruction for sacrectomy defects: A systematic review and meta-analysis. *J Plast Reconstr Aesthet Surg*, 2020; 73: 255-68.
 - 17) Miles WK, Chang DW, Kroll SS, et al : Reconstruction of large sacral defects following total sacrectomy. *Plast Reconstr Surg*, 2000; 105: 2387-94.
 - 18) Reynolds JJ, Khundkar R, Boriani S, et al : Soft tissue and bone defect management in total sacrectomy for primary sacral tumors: A systematic review with expert recommendations. *Spine (Phila Pa 1976)*, 2016; 41 Suppl 20: S199-S204.
 - 19) Furukawa H, Yamamoto Y, Igawa HH, et al : Gluteus maximus adipomuscular turnover or sliding flap in the surgical treatment of extensive sacral chordomas. *Plast Reconstr Surg*, 2000; 105: 1013-6.
 - 20) Ramirez OM, Hurwitz DJ, Futrell JW : The expansive gluteus maximus flap. *Plast Reconstr Surg*, 1984; 74: 757-68.
-