

## 经腹会阴联合直肠癌根治术后造口肿瘤并同时性肝转移 1 例报道及文献复习

李璇<sup>1</sup>, 陈钰榕<sup>1</sup>, 陈志强<sup>2</sup>, 邹瞭南<sup>3,4\*</sup>

1. 广州中医药大学第二临床医学院研究生, 广东 广州 510120

2. 广东省中医院 泌尿外科, 广东 广州 510120

3. 广东省中医院 肛肠外科, 广东 广州 510120

4. 广州中医药大学第二临床医学院, 广东 广州 510120

**【摘要】目的** 本文探讨异时性结肠造口处肿瘤的临床特点及诊治过程, 为特殊部位的异时性结直肠癌的诊治提供临床经验。**方法** 回顾性描述 1 例低位直肠癌经腹会阴联合切除术后 10 年, 出现造口处肿瘤的临床病例, 并进行相关文献复习。**结果** 结合患者病史、症状、体征及辅助检查, 考虑患者造口处肿瘤是由于造口护理不当、肠道分泌物及粪便反复污染刺激所致。患者的自身免疫系统疾病也是潜在病因。我们采取造口肿瘤及周围皮肤的根治性切除术, 术后至 2023 年 8 月 9 日未见疾病进展征象。**结论** 对于特殊部位的异时性结直肠癌, 其诊疗方式更趋向于个体化, 尚未能形成规范的治疗方案, 定期规律监测随访是早发现早诊治的有效途径, 是减少全身转移风险、提高 R0 切除机会的可靠方法。

**【关键词】** 造口肿瘤; 直肠癌根治术; 异时性肿瘤; 病例报道

## A case of stoma tumour with synchronous liver metastasis after transabdominal perineal radical resection for rectal cancer and review of literature

Li Xuan<sup>1</sup>, Chen Yurong<sup>1</sup>, Chen Zhiqiang<sup>2</sup>, Zou Liaonan<sup>3,4\*</sup>

1. Postgraduate of the Second Affiliated Hospital of Guangzhou University of Chinese Medicine, Guangzhou 510120, Guangdong, China

2. Department of Urology Surgery, Guangdong Hospital of Traditional Chinese Medicine, Guangzhou 510120, Guangdong, China

3. Department of Anorectal Surgery, Guangdong Hospital of Traditional Chinese Medicine, Guangzhou 510120, Guangdong, China

4. The Second Affiliated Hospital of Guangzhou University of Chinese Medicine, Guangzhou 510120, Guangdong, China

\*Corresponding author: Zou Liaonan, E-mail: m13423663496@163.com

**【Abstract】 Objective** This paper discusses the clinical characteristics and diagnostic and treatment process of tumours at metachronous colostomies to provide clinical experience for metachronous colorectal cancer at special sites. **Method** A clinical case of a patient presenting with tumour at the stoma 10 years after combined transabdominal perineal resection for low rectal cancer was retrospectively described, and relevant literature review was performed. **Result** Combining the patient's medical history, symptoms, signs and auxiliary examinations, it was considered that the tumours at the patient's stoma were due to improper stoma care and stimulation by repeated contamination with intestinal secretions and faeces. The patient's autoimmune system disease was also identified as a potential cause. Following the radical resection of the

基金项目: 国家区域中医(专科)诊疗中心建设专项资金资助(国中医药医政函(2018)205号  
广东省中医院外科)

\*通信作者: 邹瞭南, E-mail: m13423663496@163.com

stoma tumours and surrounding skin, no signs of disease progression have been observed from post-operation to August 9, 2023. **Conclusion** The diagnosis and treatment of metachronous colorectal cancer at special sites tends to be more individualised, and no standardised treatment plan has been formed yet. Regular monitoring and follow-up are effective ways for early detection and diagnosis and treatment, which is a reliable method to reduce the risk of systemic metastasis and improve the chance of R0 resection.

**【Key words】** Stoma tumour; Radical resection of rectal cancer; Metachronous cancer; Case report

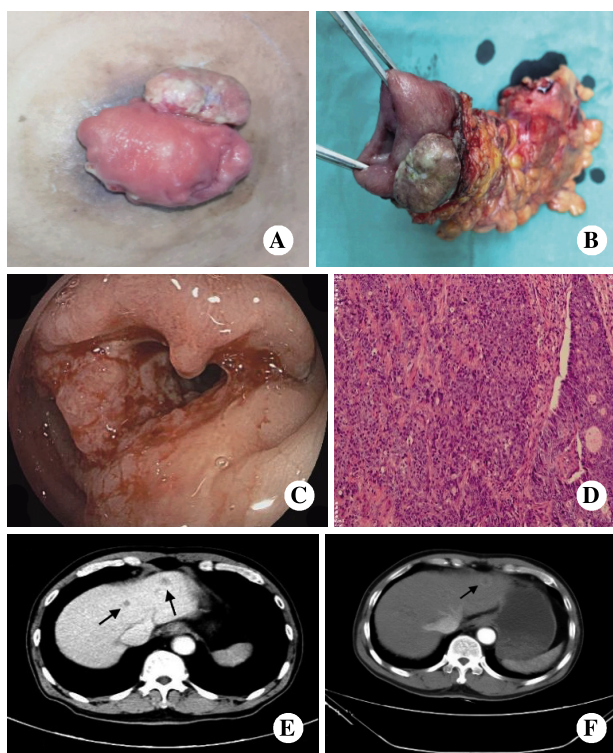
直肠癌根治术后出现异时性造口恶性肿瘤的流行病学及病因病机目前不明确。由于造口肿瘤发病率低,临床医师对于该病认识尚浅,为减少造口肿瘤的漏诊率,提升根治性手术早期干预率,使患者生存及预后获益最大化,加强造口护理宣教,定期、规律、全面复查随访是必要的。下面报道1例经腹会阴联合肛管直肠切除术(Miles术)术后10余年,发生造口处肿瘤的特殊病例,并对国内外相关研究做回顾总结。

## 1 病例摘要

58岁男性患者,2013年7月因低位直肠癌(癌肿距肛门缘约3cm)于本院行腹腔镜下Miles术+永久性结肠造口术,术后病理提示为腺癌,  $pT_3N_0M_0$ , 切缘阴性。出院后患者自行进行造口护理。2023年1月患者发现结肠造口处有一约3cm×2cm肿物,伴造口狭窄、排泄不畅等症状,自诉近半年造口周围皮肤常感瘙痒,偶有湿疹样改变,使用护肤乳膏后稍可缓解。入院后查癌胚抗原(carcinoembryonic antigen, CEA)11.28 μg/L, 甲胎蛋白(alpha fetoprotein, AFP)8.63 μg/L。全胸腹增强计算机断层扫描(computed tomography, CT)提示:肝S5多个转移瘤(最大者达1.2cm)。肠镜示:距结肠造口处5cm见一环腔生长肿物,肠腔明显狭窄。取活检提示结肠造口处腺癌。术前评估肿瘤分期为  $cT_4N_2M_1$ 。

因患者肠腔狭窄情况严重,为解除梗阻症状,于住院第3天行结肠造口肿瘤根治性切除术+结肠造口术。术后病理诊断:中-低分化腺癌,  $pT_3N_2M_1$ 。免疫组织化学结果:CDX2(+), Ki67(75%), HER2(不确定, 积分2+), CD31(脉管+)。基因检测结果:NRAS、KRAS、BRAF野生型, 微卫星稳定(microsatellite stability, MSS)。针对患者肝脏多发较大的转移灶,多学科会诊建议按结肠癌肝转移行规范的综合治疗,但患者拒绝一切静脉化疗用药,仅同意口服卡培他滨单药化疗。目前患者服用

卡培他滨1.5mg,每日2次,持续14d,每3周重复,已完成10个化疗周期。化疗期间规律复查血常规、肝肾功能、肿瘤标志物,均未见明显异常。随访至2023年8月9日已6个月有余,未出现肿瘤进展征象,评估化疗后患者处于疾病稳定(stable disease, SD)期。



**图1** 造口处肿瘤大体观、内镜、组织病理及影像学表现注:A,入院时查体可见结肠造口处3cm×2cm肿物(箭头标识);B,术后一并切除肿瘤整体及部分肠管;C,肠镜提示距造口5cm另一处肠管肿物,表面溃烂,触之出血;D,病理诊断为中-低分化腺癌,苏木精-伊红染色(×10);E,造口肿瘤切除术前增强计算机断层扫描显示肝脏多处类圆形低密度影,考虑为转移瘤(箭头所示);F,术后复查增强计算机断层扫描提示肝脏仍有多处转移瘤,体积较之前缩小(1.2cm缩小至1.1cm)(箭头所示)。

## 2 讨论

结直肠癌是常见的消化系统恶性肿瘤,2020

年全球新发的结直肠癌病例约200万,其中有30%~40%在行根治性切除术后出现异时性转移病灶,异时性病灶通常为肝、肺、腹腔淋巴结及腹膜<sup>[1-2]</sup>。发生在结肠造口处的恶性肿瘤是罕见的<sup>[3]</sup>。最早的相关病例报道在1966年,由Morgan<sup>[4]</sup>提出,该患者因溃疡性结肠炎行结肠造口术。本文对2000年后造口肿瘤的临床报道进行汇总(表1),绝大多数造口肿瘤的原发疾病为直肠癌,其中,大部分为Miles术后。Miles术后发生造口肿瘤的临床表现包括造口狭窄、造口周围皮疹、皮肤红斑、溃疡、硬结或造口及周围肿块等<sup>[5]</sup>。由于造口肿瘤的罕见性,其发病机制不明确,主要包括腺瘤-癌序列、异型增生、术中癌肿播散植入等。结直肠癌绝大多数是由正常肠上皮组织-腺瘤-腺癌演变而来<sup>[6]</sup>。Takami等<sup>[7]</sup>指出:由于体内残留的腺瘤息肉出现基因序列改变,从而导致了造口肿瘤的发生。追溯本病例病史,患者在2013年首次行肠镜检查时,确实发现结肠多发息肉,主要集中于乙状结肠处,但造口切除术术后的标本中未发现有腺瘤样息肉的直接证据,故本病例暂不支持造口肿瘤是由患者多发结肠息肉演变发展而成。造口肿瘤大多数好发于黏膜-皮肤交界处,物理创伤或化学炎症刺激更易使结肠发生化生、异型性增生及恶变<sup>[8-11]</sup>。本病例中,患者对造口护理关注度不高,缺乏对造口异常情况的处理意识,在出现造口狭窄、排泄不畅时未主动就医,且造口袋更换常不及时,造口周围长期处于污染状态,反复发生造口周围皮疹,故考虑造口处恶变可能由粪便污染、慢性炎症刺激造口及周围皮肤诱导形成。

直肠癌根治术遵循的手术原则是全系膜切除,并结扎肠管及肠系膜动脉以清扫淋巴结,然而,尚未有针对造口肿瘤的诊疗规范。局部广泛切除皮肤及皮下病变是早期造口肿瘤的首选治疗方式。由于复发肿瘤的特殊位置,结合术前内镜、影像及其他辅助检查结果,造口周围皮肤及淋巴回流有相应的肿瘤侵犯可能,为确保肿瘤的根治性切除,我们参考皮肤癌的相关手术处理方式<sup>[12-13]</sup>,术中广泛切除肿瘤病灶的同时,也切除了距离造口肿瘤缘3cm的皮肤组织,深度达1cm。这与Yusuke等<sup>[14]</sup>的处理方式相似。正如Balkwill<sup>[15]</sup>所说:基因损伤是“点燃癌症火焰的火柴”,某些炎症反应可能是提供“助长火焰的燃料”。由于术后长期的炎症反应可通过抑制免疫细胞的溶解酶活

性,来降低机体免疫应答能力;术后残留的肿瘤组织微环境及生物特性会有所改变,更容易发生增殖代谢的加速,故在原发性结直肠癌根治术后仍有一定的复发风险<sup>[16-17]</sup>。结合术后病理及进展期肿瘤的相关生物学特性,为延长患者生存期,在此案例中,我们强烈建议患者在术后至少进行卡培他滨单药化疗,并在围手术期联合运用了中医药特色疗法,提高机体免疫力,促进术后康复,以加快开展术后辅助化疗,从而有效降低术后不良反应发生及肿瘤复发风险。

由于是新发的进展期肿瘤,且肝内有多发转移,疾病偏晚期,采取本姑息切除措施是最为合适的。但很遗憾的是,为尽早缓解患者肠梗阻症状,我们仅单纯切除了肿瘤病灶及造口周围的腹壁皮肤组织,对于根部淋巴结清扫策略的考虑较为欠缺。首次术中对肠系膜下动静脉进行根部结扎,造口处的血供主要来源于中结肠动脉,对该特殊病例进行复盘回顾后,我们认为:在条件允许的情况下,手术切除范围应尽量采取D3淋巴结清扫(No.223组淋巴结),必要时可考虑结扎中结肠动脉根部,在横结肠处重新建立造口。

在异时性结直肠癌患者中,已经确定了一些影响预后的因素,包括复发部位、切缘状态、复发部位的数量、原发病灶部位和复发肿瘤的大小<sup>[18]</sup>。既往有关结肠造口恶性肿瘤文献表明,造口肿瘤切除术后的生存期为3~48个月<sup>[19]</sup>。近90%的结直肠癌在行根治术后5年内有较高的复发风险,术后5~10年复发率达6.1%<sup>[20-21]</sup>。《中国结直肠癌诊疗规范(2023版)》建议对行根治性切除的结直肠癌患者进行5年密切随访监测<sup>[22]</sup>,而结合相关临床病例报道,结肠造口处肿瘤大多发生在首次手术5年之后,因此,即使完成了结直肠癌术后5年的随访监测,仍有必要对永久性造口患者进行持续性的关注<sup>[23]</sup>。另外,由于加速康复外科理念深入实施并不断优化,肠造口术后的住院周期明显缩短,多数患者对于肠造口护理技巧掌握情况欠佳,术后易出现造口相关并发症,降低了患者术后生活质量<sup>[24]</sup>。故在持续的随访中,医护人员应对肠造口患者提供造口护理宣教,加强对他们的人文关怀和心理疏导。

造口肿瘤由于发病率低,临床医师对于该病认识尚浅,需要收集更多病例进一步探讨,但在此条件下,为减少造口肿瘤的漏诊、提升根治性手术

表 1 2000年后造口恶性肿瘤的病例报道

第一作者	报道时间 (年)	原发疾病	首次术后病理	造口肿瘤病理	复发时间	首发表现	治疗策略	术后随访时间
Shibuya T <sup>[60]</sup>	2002	直肠癌	pT <sub>1</sub> N <sub>0</sub> M <sub>0</sub>	中分化腺癌	Miles 术后 8 年	造口狭窄并出血	切除造口及周围皮肤	4 年
Iizuka T <sup>[8]</sup>	2002	家族性腺 息肉病	无	高分化腺癌	Miles 术后 14 年	造口处息肉样肿物	造口处肿瘤根治性切除	23 个月
Chintamani <sup>[25]</sup>	2007	直肠癌	pT <sub>4</sub> N <sub>0</sub> M <sub>0</sub>	低分化腺癌	Miles 术后 6 年	造口狭窄	造口 横结肠广泛切除及腹主动 脉根部淋巴结清扫	4 年
Chintamani <sup>[25]</sup>	2007	直肠癌	pT <sub>4</sub> N <sub>1</sub> M <sub>0</sub>	高分化腺癌	Dixon 术并 Hartmann 术 后 5 年	造口处 2 cm×3 cm 结节	造口处 R0 切除	1 年
Vijayasekar C <sup>[26]</sup>	2008	直肠癌	pT <sub>4</sub> N <sub>0</sub> M <sub>1</sub>	腺癌 T <sub>2</sub> N <sub>0</sub> M <sub>0</sub>	Miles 术后 14 年	造口周围 12 cm×12 cm 肿块	造口肿块并全结肠切除	未说明
Fessa CK <sup>[27]</sup>	2009	直肠癌	未说明	上皮样血管肉瘤	直肠癌根治术后 12 年	造口周围皮肤红斑	切除造口周围病变皮肤	未说明
Wild JR <sup>[28]</sup>	2011	肛管鳞癌	pT <sub>3</sub> N <sub>0</sub> M <sub>0</sub>	中分化腺癌	腹会阴切除术后 2 年 7 个月	造口处溃疡伴出血	造口肿瘤切除并周围皮肤切除	8 个月
Iwamoto M <sup>[29]</sup>	2015	直肠良性 肿瘤	无	中分化腺癌	Miles 术后 27 年	造口处 5 cm 结节伴出 血	造口周围皮肤广泛切除并左半 结肠切除术	5 年
Maeda C <sup>[19]</sup>	2015	医源性结 肠穿孔	无	中高分化腺癌	横结肠造口术后 35 年	造口处 3 cm 结节	造口肿瘤切除并周围 5 mm 皮肤 切除	17 个月
Mcintee PD <sup>[30]</sup>	2020	直肠癌	pT <sub>3</sub> N <sub>1</sub> M <sub>0</sub>	中分化腺癌	Miles 术后 14 年	造口处 3 cm 结节	切除造口距 20 cm 肠段及其筋 膜+术后辅助化疗	18 个月
Choi Y <sup>[31]</sup>	2020	直肠癌	pT <sub>3</sub> N <sub>0</sub> M <sub>1</sub>	腺癌	Miles 术后 6 年	造口处真菌性团块	造口肿瘤 R0 切除并造口近端结 肠切除术并淋巴结清扫	2 年
Kitagawa Y <sup>[14]</sup>	2021	直肠癌	未说明	高分化腺癌	Hartmann 术后 20 年	造口周围皮肤出血	造口 3 cm 肠管完整切除并周围 皮肤环形切除	1 年
Van Dam KAM <sup>[23]</sup>	2023	直肠癌	T <sub>4</sub> N <sub>2</sub> M <sub>0</sub>	皮肤腺癌	Miles 术后 16 年	造口周围皮肤湿疹样改 变, 偶有出血	距离造口皮肤 3 cm 环形切除, 切除面积约 11 cm×9 cm×3 cm	未说明
李璇	2023	直肠癌	pT <sub>3</sub> N <sub>0</sub> M <sub>0</sub>	中-低分化腺癌	Miles 术后 10 年	造口处 2 cm×3 cm 肿物 伴造口狭窄, 周围皮肤 瘙痒	造口肿瘤根治性切除并周围皮 肤环形切除+术后辅助化疗	6 个月



早期干预率,使患者生存及预后获益最大化,加强造口护理宣教,定期、规律、全面复查随访是必要的。

## 参考文献

- [1] EVDOKIMOVA S, KORNIETSKAYA A, BOLOTINA L, et al. Postoperative Chemotherapy After Surgical Resection of Metachronous Metastases of Colorectal Cancer: A Systematic Review [J]. *World J Oncol*, 2023, 14(1):26–31.
- [2] ANDREONI B, CHIAPPA A, BERTANI E, et al. Surgical outcomes for colon and rectal cancer over a decade: results from a consecutive monocentric experience in 902 unselected patients [J]. *World J Surg Oncol*, 2007, 5:73.
- [3] ZILLI L, PIETROIUSTI M, BERTARIO L. Colonoscopy in ostomy patients. Results at the first postoperative examination[J]. *Dis Colon Rectum*,1987,30(9):687–691.
- [4] MORGAN MN. Carcinoma in a caecostomy in longstanding ulcerative colitis [J]. *Proc R Soc Med*, 1966, 59(5):427.
- [5] SABATER-MARCO V, GARCIA JA, ROIG-VILA JV. Basaloid large cell lung carcinoma presenting as cutaneous metastasis at the colostomy site after abdominoperineal resection for rectal carcinoma [J]. *J Cutan Pathol*, 2013, 40(8):758–764.
- [6] 吴文琪, 万远太. 结直肠息肉肉发生发展相关因素的研究现状[J/CD]. *消化肿瘤杂志(电子版)*, 2021, 13(2): 148–152.
- [7] TAKAMI M, HANADA M, KIMURA M, et al. Adeno-carcinoma arising at a colostomy site. Report of a case [J]. *Dis Colon Rectum*, 1983, 26:50–52.
- [8] IIZUKA T, SAWADA T, HAYAKAWA K, et al. Successful local excision of ileostomy adenocarcinoma after colectomy for familial adenomatous polyposis: report of a case[J]. *Surg Today*, 2002, 32(7):638–641.
- [9] RAMANUJAM P, VENKATESH KS. An unusual case of squamous cell carcinoma arising at the stomal site: case report and review of the literature [J]. *J Gastrointest Surg*, 2002,6(4):630–631.
- [10] SHIBUYA T, UCHIYAMA K, KOKUMA M, et al. Metachronous adenocarcinoma occurring at a colostomy site after abdominoperineal resection for rectal carcinoma [J]. *J Gastroenterol*, 2002, 37(5):387–390.
- [11] RAA ST, OOSTERLING SJ, VAN DER KAAIJ NP, et al. Surgery promotes implantation of disseminated tumor cells, but does not increase growth of tumor cell clusters [J]. *J Surg Oncol*, 2005, 92(2):124–129.
- [12] 刘梅, 刘保国, 刘志军. 皮肤鳞癌的病因及治疗研究进展[J]. *中国麻风皮肤病杂志*, 2017, 33(2):121–124.
- [13] 赵斌, 田勇. 48例头面部皮肤癌手术及修复整形临床分析[J]. *苏州大学学报(医学版)*, 2009, 29(4):749–750.
- [14] KITAGAWA Y,HIRASAKI S,BANDO M. Adenocarcinoma occurring from a sigmoid colostomy 20 years after Hartmann’s procedure for rectal cancer: A case report [J]. *Int J Surg Case Rep*, 2021, 89:106660.
- [15] BALKWILL F, MANTOVANI A. Inflammation and cancer: back to Virchow? [J]. *Lancet*, 2001, 357(9255): 539–545.
- [16] TEMPLETON AJ, MCNAMARA MG, ŠERUGA B, et al. Prognostic role of neutrophil-to-lymphocyte ratio in solid tumors: a systematic review and meta-analysis [J]. *J Natl Cancer Inst*, 2014,106(6):1–11.
- [17] 魏正阔, 谢振斌. 不同化疗方案对中晚期结直肠癌术后多种肿瘤标记物影响的综合分析[J]. *世界最新医学信息文摘*, 2015, 15(88):61–62.
- [18] HARJI DP, SAGAR PM, BOYLE K, et al. Surgical resection of recurrent colonic cancer [J]. *Br J Surg*, 2013, 100(7):950–958.
- [19] MAEDA C, HIDAKA E, SHIMADA M, et al. Transverse colon cancer occurring at a colostomy site 35 years after colostomy: a case report [J]. *World J Surg Oncol*, 2015, 13:171.
- [20] CASO R, FABRIZIO A, SOSIN M. Prolonged follow-up of colorectal cancer patients after 5 years: to follow or not to follow, that is the question (and how)? [J]. *Ann Transl Med*, 2020, 8(5):164.
- [21] FRONTALI A, BENICHO B, VALCEA I, et al. Is follow-up still mandatory more than 5 years after surgery for colorectal cancer? [J]. *Updates Surg*, 2020, 72(1):55–60.
- [22] 国家卫生健康委员会医政司, 中华医学会肿瘤学分会, 顾晋, 等. 中国结直肠癌诊疗规范(2023版)[J/CD]. *消化肿瘤杂志(电子版)*, 2023, 15(3):177–206.
- [23] VAN DAM KAM, TWEED TTT, DE VRIES B, et al. Peristomal adenocarcinoma 16 years after colorectal adenocarcinoma resection with curative intent [J]. *J Surg Case Rep*, 2023, 2023(7):1–4.
- [24] 张颜, 康春博, 贺姗杉, 等. 基于5A模式的分级干预对低位直肠癌结肠造口患者的影响研究[J/CD]. *消化肿瘤杂志(电子版)*, 2023, 15(3):241–247.
- [25] CHINTAMANI, SINGHAL V, BANSAL A, et al. Isolated

- colostomy site recurrence in rectal cancer—two cases with review of literature[J]. *World J Surg Oncol*, 2007, 5:52.
- [26] VIJAYASEKAR C, NOORMOHAMED S, CHEETHAM MJ. Late recurrence of large peri-stomal metastasis following abdomino-perineal resection of rectal cancer[J]. *World J Surg Oncol*, 2008, 6:96.
- [27] FESSA CK, SHARMA R, FENANDEZ-PERNANDEZ P. Cutaneous epithelioid angiosarcoma occurring at a peristomal site [J]. *J Am Acad Dermatol*, 2010 ,63 (2): e55–56.
- [28] WILD JR, GARNER JP, SKINNER PP. Adenocarcinoma of a colostomy following abdominoperineal resection for squamous cell carcinoma of the anal canal: a case study [J]. *Ostomy Wound Manage*, 2011, 57(5):38–40.
- [29] IWAMOTO M, KAWADA K, HIDA K, et al. Adenocarcinoma arising at a colostomy site with inguinal lymph node metastasis: report of a case [J]. *Jpn J Clin Oncol*, 2014,45 (2): 217–220.
- [30] MCENTEE PD, MCCORMICK PH, KEARNEY DE. Metachronous colorectal adenocarcinoma at colostomy site 14 years after primary resection [J]. *BMJ Case Rep*, 2020, 13(3): e234304.
- [31] CHOI Y, LEE K, PARK Y, et al. Metachronous carcinoma at the colostomy site after abdominoperineal resection of rectal cancer: a case report[J]. *Ann Coloproctol*, 2023, 39(2):175–177.

收稿日期:2023-09-04