

症例報告

胸部食道癌手術後にSister Mary Joseph noduleを来した1例

小林和貴, 辻本広紀, 矢口義久, 伊藤 希, 原田 学,
土屋 智, 神津慶多, 板崎勇二郎, 長谷和生, 上野秀樹

防医大誌 (2020) 45 (1) : 11-14

要旨:【緒言】 Sister Mary Joseph Nodule (以下, SMJN) は悪性腫瘍の臍転移を来した病態である。今回我々は, 胸部食道癌術後早期にSMJNを認めた1症例を経験したので報告する。【症例】 患者は50歳代の男性。X年1月に食道癌UtT3N1 (#106RecL) M0, Stage IIIの診断で, 術前化学療法として5-FU+CDDP (以下, FP) 療法を2コース施行後, 同年6月に胸腔鏡下食垂全摘術, 3領域郭清を行った。同年12月, 6ヶ月目の定期受診時に臍部に3cm大の圧痛を伴わない硬結を触知した。造影CTにて同部位に造影を伴う腫瘤が存在し, PET-CTにて, 頸部リンパ節, 縦隔リンパ節と共に, 臍部に集積を認めたためSMJNと診断した。SMJNから3ヶ月後の現在, 外来にて化学療法を施行している。【結語】 本症例では腹膜播種は明らかでなく, 転移の様式は経脈管転移が疑われた。胸部食道癌のSMJNは稀であり, 文献的考察を加えて報告する。

索引用語: 食道癌 / SMJN再発 / FP療法

緒言

Sister Mary Joseph Nodule (以下, SMJN) は, 悪性腫瘍の臍転移を来した病態であるが, その報告の多くは胃癌や婦人科腫瘍で, 腹膜播種によるものが多く, 胸部食道癌のSMJNの報告は稀である。今回, 我々は食道癌術後早期にSMJNを認めた1例を経験したので報告する。

症例

患者: 54歳の男性。

主訴: 嘔声。

現病歴: X年1月に主訴を自覚し, 近医を受診したところ, 左反回神経麻痺を指摘され, 当院耳鼻咽喉科を紹介された。CT検査にて胸部上部食道の腫瘍性病変と左反回神経周囲のリンパ節転移が疑われたために当科に紹介された。

既往歴: 48歳 痛風発作。

生活歴: 喫煙歴 なし。飲酒 焼酎1000ml/日程度。

身体所見: 169.8cm, 60kg, BMI 21。嘔声を

認めた。肺音は左右差なく清で, 心音も雑音なく整であった。腹部は平坦, 軟で, 自発痛や圧痛, および腫瘤を触知しなかった。腸雑音も正常であった。また表在リンパ節は触知しなかった。

血液検査所見: Hbが11.0 g/dlと貧血があり, 腫瘍マーカーはCEAが5.7 ng/mlであったが, CYFRA, SCCの上昇は認めなかった。

上部消化管内視鏡検査: 切歯23cmに後壁右側壁にかけて1/4周性の2型腫瘍を認め, 同部位の生検にて扁平上皮癌と診断された。

造影CT: 食道Ut領域に造影効果を伴う腫瘍性病変が見受けられた。左反回神経周囲に造影効果を伴う結節性病変が存在し, リンパ節転移が疑われた。その他の部位に異常所見は明らかでなかった。

PET-CT: 原発巣, 甲状腺左葉, 右声帯, 前立腺右葉にFDGの異常集積を来していた。その他, リンパ節転移や遠隔転移を示唆する異常集積はなかった。

入院後経過: 以上から食道癌Ut T3N1 (#106RecL)

M0, Stage IIIと診断した。術前化学療法としてFP療法(5-FU 800mg/m², Day1-5+CDDP 80mg/m², Day1, 4週ごと)を2コース施行後(RECISTの効果判定ではSD), X年6月に胸腔鏡下食道亜全摘術, 3領域郭清を施行した。術中所見では106RecLリンパ節が左内頸静脈, 内頸動脈, 気管左側に固着しており浸潤が疑われた。腹腔鏡による観察では明らかな腹膜播種を認めなかった。術後診断は, Ut pT4b (気管) N1 (#101L, #106recL) M0, Stage IVaで, 組織学的な術前化学療法の効果判定はGrade 1aであった。#106RecLリンパ節の剥離断端に腫瘍細胞の遺残が疑われたため, 頸部に化学放射線療法(60Gy, (5-FU 700mg/m², Day1-4+CDDP 70mg/m², Day1, 4週ごと))を施行した。同年12月の検査所見において, CEA 6.9ng/ml, SCC 2.6ng/mlと腫瘍マーカーは上昇していた。診察にて臍部に3cm大の圧痛を伴わない硬結を触知し, CTでは同部に短径3cmの造影効果を伴う腫瘤が確認さ

れた(図1)。また, 左頸部リンパ節, 縦隔リンパ節の腫脹を認めた。PET/CTにおいてこれらの部位へのFDG-PETの異常集積を認め(図2), 血液検査所見ではCRP1.0 mg/dlと炎症反応は異常高値ではなく, 頸部・縦隔リンパ節再発およびSMJNと診断した。SMJNを来してから3ヶ月後の現在, 外来にてDocetaxel (70 mg/m², Day1, 3週ごと)による化学療法を施行中である。

考 察

1928年にMayo¹⁾が内臓悪性腫瘍の臍転移を初めて報告し, 助手として予後評価を行ったSister Maryの功績を称え, Bailey²⁾が1949年に内臓悪性腫瘍の臍転移をSister Mary Joseph Noduleと名付けた。内臓悪性腫瘍の皮膚転移の予後は, 10年生存率が5~10%と報告されており^{3, 4)}, SMJNを来した場合には, 平均余命は10~12カ月と極めて不良である⁵⁾。胃癌や卵巣癌ではSMJNは予後不良因子として広く知ら

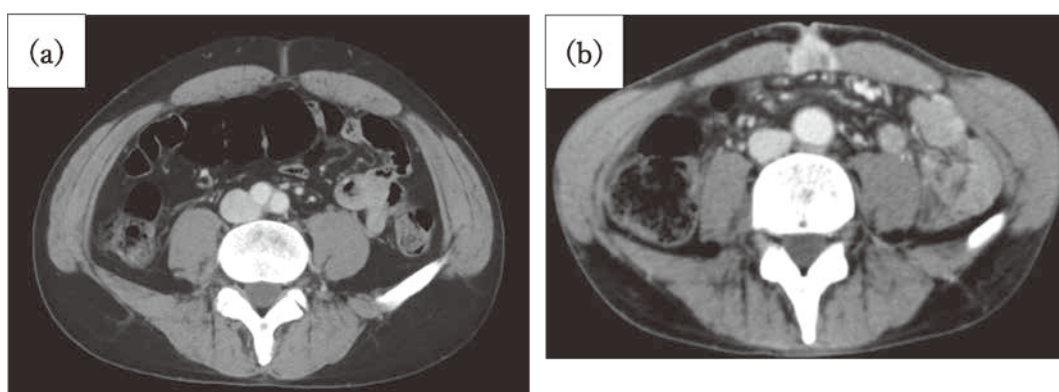


図1. 造影CT検査

(a) 食道癌術前臍部, (b) 食道癌術後6ヶ月臍部。

(a) では認めなかった臍部に内部不均一な造影効果を伴う3cm大の腫瘤影を認める。

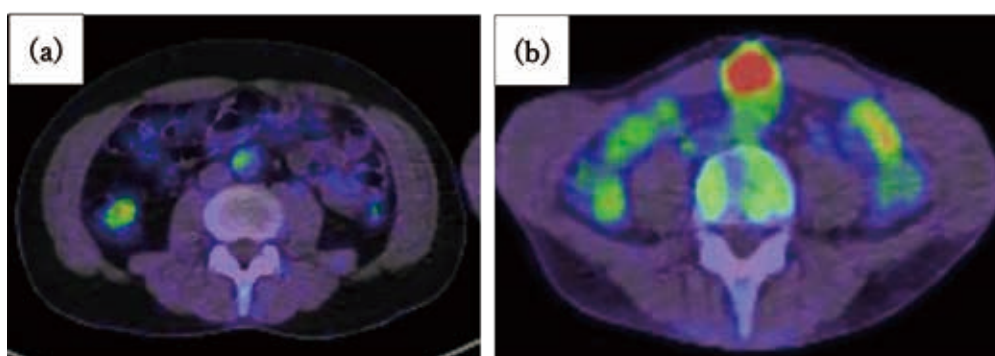


図2. PET-CT検査

(a) 食道癌術前臍部, (b) 食道癌術後6ヶ月臍部。

(a) では臍部にFDGの異常集積を認めなかったが, (b) で新規に認める。

表1. SMJNの原発巣が食道癌であった症例

Author	Year	Age/Gender	Metastasis route	Location	Treatment	Prognosis
Wijekoon NS et al. ⁹⁾	2008	77/M	Direct invasion	Lower thoracic esophagus	-	Unknown
Mashimo Y et al. ¹⁰⁾	2011	74/M	Unknown	Lower thoracic esophagus	Operation	10 months
Kobayashi K et al.	2019	54/M	Intravascularly	Upper thoracic esophagus	-	Over 3 months

れている。近年の悪性腫瘍に対する集学的治療の進歩により、長期予後が得られた報告も散見されるようになってきたが⁶⁾、依然その数は少なく、予後は化学療法への感受性によって左右されると考えられる。

SMJNの原発臓器は多岐にわたるが、GalvanらのSMJN 465症例の検討では、胃癌が101例、卵巣癌が77例、直腸/大腸癌が66例と胃癌が最も多かった^{7, 8)}。食道癌によるSMJNの報告は、PubMedにて「esophageal cancer」, 「Sister Mary Joseph Nodule」をキーワードとして検索したところ(1990年から2018年)、自験例を含めて報告は3例のみであり、極めて稀と言えよう(表1)^{9, 10)}。

内臓悪性腫瘍の臍への転移様式は、腹膜播種巣からの直接浸潤や、血行性転移あるいはリンパ行性転移などの経脈管転移、そして腹腔鏡操作による臍へ腫瘍細胞のimplantationによる医原性転移が考えられている。経脈管転移の場合には、胎生期の遺残である尿管管や、卵黄動脈、肝円索を介する転移様式が考えられている。本症例では、手術時の腹部操作では明らかな腹膜播種を認めず、再発時の画像診断においても腹膜播種は否定的であり、また腫瘍の摘出は頸部から行っていることから、経脈管転移の可能性が高いと考えられた。

SMJNへの治療に関して、姑息的治療が3症例のうち2症例で行われた(表1)。卵巣癌では、SMJNに対する手術や化学療法などの積極的な治療が生命予後の延長に寄与するとの報告もあるが、食道癌報告例においても、手術によりSMJNを切除した1例については比較的予後が良好であった¹¹⁾。本症例では、術前化学療法の効果判定はGrade 1aであり、また化学放射線療法に対しても抵抗性であること、さらにSMJNのみならず左頸部、縦隔リンパ節にも再発が認

められたことからDocetaxelによる化学療法を選択した¹²⁾。食道癌におけるSMJNに対する治療選択や予後因子としての意義に関しては、さらなる症例の蓄積が必要であると考えられた。

利益相反

本論文に関して開示すべき利益相反はありません。

文 献

- 1) Mayo WJ.: Metastasis in cancer. *Proc Staff Meet Mayo Clin* 3: 327, 1928.
- 2) Bailey H.: Demonstrations of physical sign in clinical surgery. *The Williams and Wilkins* 11: 227, 1949.
- 3) Lookingbill DP, Spangler N, Sexton FM.: Skin involvement as the presenting sign of internal carcinoma. *J Am Acad Dermatol* 22: 19-26, 1990.
- 4) Lookingbill DP, Spangler N, Helm KF.: Cutaneous metastases in patients with metastatic carcinoma. a retrospective study of 4020 patients. *J Am Acad Dermatol* 29: 228-236, 1993.
- 5) Dubreuil A, Domp martin A, Barjot P, Louvet S, Leroy D.: Umbilical metastasis or Sister Mary Joseph's nodule. *Int J Dermatol* 37: 70-73, 1998.
- 6) Ota S, Haruyama T, Ishihara M, Natsume M, Fukasawa Y, Sakamoto T.: A Patient with Advanced Gastric Cancer Who Achieved a Long-Term Prognosis by Early Diagnosis of Sister Mary Joseph's Nodule. *Case Reports in Oncology* 11: 11-16, 2018.
- 7) Zhang, Z., Wang, J., Huang, J., & Yu, X.: Umbilical metastasis derived from early stage rectal cancer: A case report. *World Journal of Surgical Oncology* 12: 1-4, 2014.
- 8) Galvan VG.: Sister Mary Joseph's nodule. *Ann Intern Med* 128: 410, 1998.
- 9) Wijekoon NS, Samarasekera DN.: Sister Mary Joseph's nodule as the sole presenting feature of disseminated squamous cell cancer of the esophagus: a rare case. *J Gastrointest Canc* 38: 99-101, 2007.
- 10) Mashimo Y, Horimatsu T, Miyamoto S.: Umbilical Metastasis (Sister Mary Joseph's Nodule) From Esophageal Squamous Cell Carcinoma. *Clin Gastroenterol Hepatol* 9: A20, 2011.
- 11) Majmudar B, Wiskind AK, Croft BN, Dudley AG.:

The Sister (Mary) Joseph nodule: its significance in gynecology. *Gynecol Oncol* 40: 152-159, 1991.

- 12) Ford H, Marshall A, Wadsley J, et al.: COUGAR-02: A randomized phase III study of docetaxel versus

active symptom control in patients with relapsed esophagogastric adenocarcinoma. *Journal of Clinical Oncology* 30: suppl 34, 2012.

Sister Mary Joseph's Nodule from thoracic esophageal cancer

Kazuki KOBAYASHI, Hironori TSUJIMOTO, Yoshihisa YAGUCHI,
Nozomi ITO, Manabu HARADA, Satoshi TSUCHIYA, Keita KOUZU,
Yujiro ITAZAKI, Kazuo HASE and Hideki UENO

J. Natl. Def. Med. Coll. (2020) 45 (1) : 11 – 14

Abstract: **[Introduction]** Metastatic involvement of the umbilicus as a result of esophageal cancer is a very rare occurrence and is known as Sister Mary Joseph nodule (SMJN). We encountered a rare case of SMJN occurring after subtotal esophagectomy. Here, we report this case and include a literature review. **[Case]** A man in his fifties was diagnosed with stage III (tumor–node–metastasis classification, cT3N1M0) advanced esophageal cancer. The patient received systemic chemotherapy (FP therapy: 5-fluorouracil + cisplatin). After 2 courses of chemotherapy, we performed subtotal esophagectomy and three-field lymph node dissection. After 6 months, the patient noticed the development of a slight protuberance in his umbilical region (the largest diameter was 3.0 cm). Contrast-enhanced computed tomography (CT) and positron emission tomography-CT were used to evaluate suspected metastatic involvement of the cervical lymph node, mediastinal lymph node, and umbilicus; we established a diagnosis of SMJN. Chemotherapy was initiated, and he remains alive 4 months after the diagnosis of SMJN. **[Conclusion]** In this case, the metastasis was considered to develop intravascularly because there was no peritoneal dissemination. SMJN as a result of esophageal cancer is very rare. This report includes a literature review.

Key words: Esophageal cancer / Sister Mary Joseph nodule / FP therapy