

慢性肛瘘继发肛周黏液腺癌1例并文献复习

谢 艳^{1*}, 李婵娟¹, 樊善堃¹, 李 庚², 吴 伟², 谢 钧^{3#}

¹云南中医药大学第一临床医学院, 云南 昆明

²云南中医药大学第一附属医院肛肠科, 云南 昆明

³昆明医科大学第二附属医院中医科, 云南 昆明

收稿日期: 2025年5月13日; 录用日期: 2025年6月6日; 发布日期: 2025年6月17日

摘 要

为了探讨肛瘘继发肛周黏液腺癌的诊断、治疗及预后, 提高临床医务工作者对该疾病的认识, 早期诊断, 避免漏诊、误诊, 降低远期并发症及死亡率, 对昆明医科大学第二附属医院中医科收治的1例肛瘘继发肛周黏液腺癌病例进行分析并回顾性总结文献报道的相关诊治经验, 发现肛瘘癌变病程进展缓慢, 在病变早期通常无排便习惯改变及直肠刺激症状, 缺乏特征性的临床表现, 致使该病误诊、漏诊率高, 确诊需依靠瘘管及相关肿物的病理学活检。因此对于长期不愈的肛瘘应警惕恶变的可能, 及时完善组织病理学检查有助于早期诊断和治疗, 提高患者预后。

关键词

肛瘘, 黏液腺癌, 诊断, 治疗, 文献复习

Perianal Mucous Adenocarcinoma Secondary to Chronic Anal Fistula: A Case Report and Literature Review

Yan Xie^{1*}, Chanjuan Li¹, Shankun Fan¹, Geng Li², Wei Wu², Jun Xie^{3#}

¹First Clinical Medical College, Yunnan University of Chinese Medicine, Kunming Yunnan

²Anorectal Department, The First Affiliated Hospital of Yunnan University of Chinese Medicine, Kunming Yunnan

³Department of Traditional Chinese Medicine, The Second Affiliated Hospital of Kunming Medical University, Kunming Yunnan

Received: May 13th, 2025; accepted: Jun. 6th, 2025; published: Jun. 17th, 2025

*第一作者。

#通讯作者。

文章引用: 谢艳, 李婵娟, 樊善堃, 李庚, 吴伟, 谢钧. 慢性肛瘘继发肛周黏液腺癌 1 例并文献复习[J]. 临床医学进展, 2025, 15(6): 999-1006. DOI: 10.12677/acm.2025.1561817

Abstract

In order to explore the diagnosis, treatment and prognosis of perianal mucinous adenocarcinoma secondary to anal fistula, improve the understanding of clinical staff on this disease, make early diagnosis, avoid missed diagnosis and misdiagnosis, and reduce long-term complications and mortality, a case of perianal mucinous adenocarcinoma secondary to anal fistula admitted to Department of Traditional Chinese Medicine, The Second Affiliated Hospital of Kunming Medical University, was analyzed and the relevant diagnosis and treatment experience reported in the literature was retrospectively summarized. It was found that the course of anal fistula cancer progressed slowly, there were usually no bowel habit changes and rectal irritation symptoms in the early stage of the disease, and the lack of characteristic clinical manifestations led to a high rate of misdiagnosis and missed diagnosis of the disease, and the diagnosis was determined by pathological biopsy of fistulas and related tumors. Therefore, the possibility of malignant transformation should be vigilant for the long-term unhealed anal fistula, and timely improvement of histopathological examination is conducive to early diagnosis and treatment, and improve the prognosis of patients.

Keywords

Anal Fistula, Mucinous Adenocarcinoma, Diagnosis, Treatment, Literature Review

Copyright © 2025 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 引言

肛周黏液腺癌(perianal mucinous adenocarcinoma, PMA)是一种罕见的肛周恶性肿瘤。自 1934 年 Rosser [1]首次报道了 7 例由慢性肛瘘继发的 PMA 病例以来,国内外有此类疾病的报道,但数量较少,近年来随着诊疗技术的提高其文献报道有所增加。由于 PMA 缺乏典型的临床表现,早期诊断较为困难,容易被漏诊、误诊,需要一次甚至多次取材活检方能明确诊断。高度的临床怀疑和组织病理学检查是该病诊断的重要条件。由于该病的发病机制及生物学行为尚不确切,各种治疗方法缺乏多中心、大样本、高质量的临床对照研究,目前尚未形成统一的共识。本文基于昆明医科大学第二附属医院中医科接诊的 1 例慢性肛瘘继发肛周黏液腺癌的患者进行病例报道,并结合国内外相关文献,探讨该类疾病的诊治方案,以期临床诊疗提供参考。

2. 临床资料

2.1. 病史简介

现病史:患者男性,57 岁,因“发现肛周包块 1 年余”于 2024 年 3 月 7 日于昆明医科大学第二附属医院中医科门诊就诊。患者 1 年前右侧肛周出现两个拇指样大小的肿物,未予重视,未行诊治,一年来肿物逐渐增大,自觉肛周肿胀不适,时有肛门瘙痒、潮湿,无红肿疼痛,无破溃流脓,无恶寒发热,无便血,无排便习惯改变,无粘液样大便,未予诊治,为寻求治疗遂于我科门诊就诊,门诊以“肛周囊肿”收入院。患者自发病以来神志清楚,精神状态良好,体力情况良好,食欲食量良好,睡眠良好,小便正常,大便质软成形,平均一天一次,体重无明显变化。

既往史：患者 20 余年前于当地医院行“肛周脓肿切开引流术”，术后肛周反复破溃流脓，未行规范治疗，于 2016 年前往当地医院就诊，诊断为“肛瘘”，行“肛瘘切除术”。

个人史：吸烟 40 余年，平均 20 支/天，现未戒烟；饮酒 30 余年，偶尔饮酒，平均 2 两/次，现未戒酒。

婚育史：25 岁结婚，育有 1 子，配偶及儿子均健康。

家族史：否认家族肿瘤及遗传性疾病病史。

2.2. 专科查体

全腹无压痛、反跳痛，未触及包块，肠鸣音正常。双侧锁骨上淋巴结、腋窝下淋巴结及腹股沟区淋巴结未触及肿大。肛门截石位，视诊：肛周 6~12 点位距肛缘 2 cm 处可见三个类圆形肿块，大小分别为 5 cm × 5 cm × 3 cm、4 cm × 3 cm × 1 cm、4 cm × 2 cm × 1 cm，皮色正常，无破溃流脓，肛周 5、6、9 点位可见陈旧性手术疤痕，9 点位疤痕处可见淡红色增生性肉芽组织；指检：肛周肿块边界清晰，皮温不高，稍压痛，有波动感，肛门无明显狭窄，肛内进指 6 cm 未触及可疑肿物，指套无染血；镜检：直肠黏膜无充血、糜烂，肛窦处无红肿。

2.3. 辅助检查

糖类抗原 CA-242 升高(35.0 U/mL，正常：0~25 U/mL)，其他生化结果未见明显异常。盆腔 MRI：肛周右侧见多发类圆形稍长及稍短 T1、长 T2 等混杂信号影，弥散病变内见多发小点片状受限灶，增强扫描可见边缘强化及中心条絮状强化，肛管受推压向左侧移位，直肠壁无增厚，盆腔未见肿大淋巴结，未见积液，双侧腹股沟区未见异常，考虑为肛周表皮样囊肿可能，其他待排外(见图 1)；电子结肠镜检查提示：结直肠多发小息肉(山田 I 型)；电子胃十二指肠镜检查提示胃多发溃疡、慢性胃炎、十二指肠球炎；胸部、全腹 CT 平扫未见转移灶。

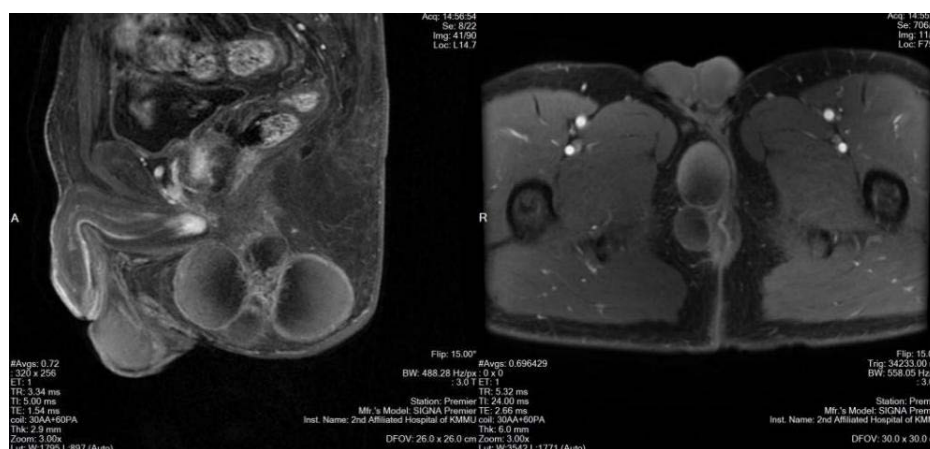


Figure 1. Preoperative MRI examination results

图 1. 术前 MRI 检查结果

2.4. 治疗

根据患者症状、体征及辅助检查，入院诊断为肛周囊肿，拟行肛周囊肿切除术，于肿块最高点做放射状切口，可见有大量胶冻样液体流出，其味臭秽，立即取材部分囊肿壁及增生性肉芽组织行术中冰冻病理检查，结果提示恶性肿瘤，考虑黏液腺癌。患者完善相关辅助检查后提示肿瘤形状规则，有完整的

囊壁组织, 肛管、直肠黏膜未被肿瘤组织侵犯, 结直肠无明显粘膜病变, 无确切淋巴结转移或远处转移征象, 拟于全麻下行肛周恶性肿瘤局部扩大切除术, 达到治愈性切除的目的, 于肛周右侧做纵行切口, 切口长约 10 cm, 术中发现肿瘤包膜完整, 沿肿瘤包膜外 1 cm 完整切除肿瘤组织并送病理检查, 病理诊断为黏液腺癌, 切缘均为阴性(见图 2)。免疫组化结果: P40(-), CEA(+), P16(+), P53(+), Ki-67(70%), CK20(-), CK7(+), MUC2(+), SATB2(-), CDX-2(-), Her-2(-), PD-L1(CPS: 1)。肿瘤分期为 T3N0M0 (IIB 期)。患者术后伤口恢复良好, 未返院行放化疗, 出院后 3 个月、半年电话随访, 患者疗效满意, 未诉特殊不适, 继续随访中。

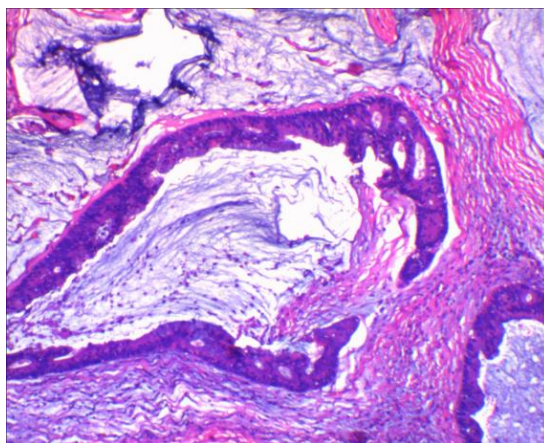


Figure 2. Pathological examination of surgical specimens (HE, 100×)

图 2. 手术标本病理检查(HE, 100×)

3. 讨论

肛门恶性肿瘤罕见, 在下消化道恶性肿瘤中占比不到 5% [2]。肛门恶性肿瘤以鳞状细胞癌最为常见, 肛管腺癌仅占肛门恶性肿瘤的 5%~10% [3]。肛管腺癌是肛管腺上皮的腺体形成的癌变[4], 临床分为黏膜型和黏膜外型两种亚型, 前者起源于腔内黏膜, 组织病理学特征与结直肠腺癌难以区分; 后者缺乏黏膜病变, 大多数病例与慢性肛瘘关系密切, 病理类型多为黏液型。黏膜型肠腔内黏膜有明确的肿瘤样病变, 与慢性肛瘘无关; 黏膜外型黏膜未见肿瘤样改变, 偶可见炎性溃疡病灶, 绝大多数病例伴有慢性肛瘘病史。继发于慢性肛瘘的肛周黏液腺癌即是肛管腺癌的一种组织学亚型[5]。本例患者有 20 余年的肛瘘病史, 电子结肠镜检查提示结直肠多发小息肉(山田 I 型), 电子胃十二指肠镜检查提示胃多发溃疡、慢性胃炎、十二指肠球炎, 未发现其他胃肠道黏膜病变及占位性肿块, 由此排除由肛管直肠部恶性肿瘤扩散到肛周组织及胃肠道肿瘤转移的可能性, 手术送检标本显微镜下可见多个粘液池, 其周围散在分化良好的柱状细胞, 因此考虑该病为瘘管相关性肛周黏液腺癌。

肛瘘是临床常见疾病, 部分经久不愈的肛瘘可发生癌变, 但临床上较少见。慢性肛瘘继发肛周黏液腺癌过去只有少数病例报道。目前关于肛瘘癌变的病因病机尚不明确。由于慢性肛瘘病程较长, 炎症反复发作, 有报道认为长期的慢性炎症刺激诱发腺上皮或窦道上皮异常增生是肛瘘癌变的主要原因[6]。肛周克罗恩病是瘘管相关性恶性肿瘤发病的危险因素[7], 在克罗恩病患者中慢性肛瘘癌变罕见, 其发病率、诊断及治疗临床研究较少[8]。糖尿病也是该病的危险因素[9]。

瘘管相关性肛周黏液腺癌患者存在经久不愈或反复发作的肛瘘病史。通常慢性肛瘘引起的肛周黏液腺癌大约需要 10 年的时间[10], 且肛瘘病史越长, 发生肛周黏液腺癌的风险越高[11]。其临床症状为: 短期内肛瘘症状加重, 局部分泌物增多, 分泌物性状改变, 可由脓性分泌物转变为胶冻样、黏液样分泌物;

肛周出现肿块, 进行性增大, 无明显红肿热痛等急性炎症的表现, 后期肿块可自行破溃, 流出伴恶臭的坏死组织; 可伴有肛周局部疼痛, 呈持续性、渐进性加重的趋势; 肛瘘外口组织异常增生, 可因肿瘤的侵袭导致溃疡性或堵塞性改变; 晚期可伴有腹股沟区淋巴结进行性肿大, 抗感染治疗无效[12][13]。本例患者临床表现为肛周较大包块, 无红肿热痛等急性炎症表现, 无破溃流脓, 无肛周局部疼痛, 术前 MRI 检查提示肿块形状规则, 可见完整囊壁组织, 因此入院诊断为肛周囊肿, 未怀疑肛瘘癌变导致的恶性肿瘤。

根据 Rosser [1] 的描述, 肛瘘来源的肛周黏液腺癌应具有以下三个特征: 一是肛瘘病史应超过 10 年, 肛瘘病史越长, 发生黏液腺癌的风险也随之增加。然而, 将肛瘘病史设定为 10 年及以上的基本原理尚不清楚, 部分肛瘘继发肛周黏液腺癌的患者可由持续时间不到 10 年的肛瘘引起。二是任何累及直肠或肛管的肿瘤均由癌细胞经瘘管播散。三是瘘管内口位于肛管, 外口位于肛周皮肤。瘘管相关性肛周黏液腺癌早期诊断较为困难, 因为肿瘤生长缓慢, 较少侵犯肛管黏膜, 因此较少出现便血、大便次数增多、大便变细以及肛门里急后重等症状。同时早期临床表现多被肛周脓肿或肛瘘的症状所掩盖, 从而忽略了对腺癌的怀疑, 导致早期诊断困难[14]。此外癌细胞通常位于组织深处, 浅表活检无法获得恶性肿瘤的证据, 甚至需要多次活检方能确诊[15], 特别是瘢痕化、纤维化严重的病例, 只提示慢性炎症反应, 影响早期诊断。因此临床医生应该对慢性肛瘘患者提高警惕, 尤其肛瘘病史超过 10 年, 肛瘘反复发作, 术后切口愈合不良的患者应警惕肛瘘癌变, 尽快完善病理活检, 甚至需要多次深部活检以减少漏诊。此外, 对于术后切口愈合不良, 短期内肛瘘症状加重, 分泌物形状改变以及肛门疼痛等的患者, 即使肛瘘病史不足 10 年, 也不应排除黏液腺癌的可能性。同时对肛瘘反复发作的患者临床医生应加强宣传教育, 叮嘱患者密切关注局部症状的变化, 定期复诊, 必要时取材活检。

病理诊断是诊断肛瘘相关黏液腺癌的“金标准”。病理特征表现为细胞外粘液池占肿瘤组织的 50% 以上, 肿瘤性腺体衬覆于粘液池周边, 腺上皮分化良好, 粘液池内漂浮恶性上皮细胞, 腺泡状排列或单个散在, 包括印戒细胞等[16][17]。磁共振成像(MRI)有助于瘘管相关性黏液腺癌的诊断, 其特征性表现为: T2 加权成像肿块呈典型的高信号, 肿块内实质性部分强化, 由粘蛋白、间质、血管组成的网状结构内部强化, 弥散加权成像(DWI)肿块呈高信号, 肿块与肛管直肠之间存在瘘管[18]。然而, MRI 的结果是非特异性的, T2 加权成像脓液和黏液都表现为高信号, 致使黏液腺癌与脓肿难以区分[19]。肿块与肛管直肠之间存在的瘘管, 是肛瘘相关性黏液腺癌的特征性表现[20]。此外 MRI 能准确显示肛周解剖结构, 肿瘤的浸润程度, 以及是否存在淋巴结转移, 是肿瘤术前评估和制定治疗策略的重要依据。肛门内超声(EAUS)对肛周黏液腺癌的诊断发挥重要作用。EAUS 下的黏液腺癌表现为多个低回声腔室, 这些腔室被薄分隔隔开, 在这些腔室内, 不同数量的等回声成分可能反映黏液腺癌中黏液池的存在[21]。

由于肛周黏液腺癌临床罕见, 对于该疾病的治疗尚未形成统一的专家共识。手术根治性切除是肛瘘癌变首选的治疗方法[22]。肿瘤的完整切除和获得阴性切缘是手术治疗的基本原则。目前手术方式包括腹会阴联合切除和广泛性局部切除。肛周黏液腺癌是一种生长缓慢、分化良好的恶性肿瘤, 多以局部发病为主, 切除不彻底时易复发, 很少发生转移, 常见的转移途径是淋巴转移, 腹股沟淋巴结是最常见的转移部位, 远处转移很少见[23]。当肿瘤处于早期, 未发生转移, 未侵犯肛管, 手术能完整切除肿瘤组织达到切缘阴性且不损害肛门括约肌时首先考虑广泛性局部切除, 其创伤较小, 术后并发症发生率较低。有临床研究认为, 对于未出现转移的肿瘤, 广泛性局部切除是足够的[12][24][25]。对于不适合广泛性局部切除的患者(如肛管或直肠被肿瘤累及、肛门括约肌受到严重侵犯、肿瘤发生转移扩散等), 需行腹会阴联合切除或肛提肌外腹会阴联合切除术以降低手术标本边缘的阳性率及术后局部复发率。由于该手术方式切除范围较大, 导致较大的皮肤及皮下组织缺损, 往往需进行盆底重建[18]。本例患者肿瘤形状规则, 有完整的囊壁组织, 相关辅助检查结果未提示腹股沟淋巴结转移和远处转移, 肛管、直肠黏膜未被肿瘤组

织侵犯, 因此对患者采取肛周恶性肿瘤局部扩大切除术, 达到治愈性切除的目的, 切除肿瘤组织病检结果提示手术切缘阴性。

与非黏液性肿瘤相比, 黏液性病变对放化疗的反应较差[26], 但近年来, 使用联合放化疗治疗肛管癌越来越受到临床关注[27]。有研究表明联合放化疗可改善局部晚期肿瘤的预后[28] [29]。肛管癌患者同时接受放化疗的5年生存率约为73% [30]。对于肛瘘引起的肛周黏液腺癌的患者当肿瘤未完全切除或患者拒绝手术时, 放化疗联合治疗是一种有效且恰当的选择[26]。有研究表明, 新辅助放化疗在肛周黏液腺癌的治疗中发挥着重要作用, 术前给予新辅助放化疗的患者预后更好, 无病生存期更高, 值得进一步研究[31], 而对于没有发生淋巴结转移, 手术切缘阴性的患者术后暂不进行辅助化疗[32] [33]。由于该肿瘤的罕见性缺乏大样本的临床对照研究, 关于放疗和化疗是同时进行还是依次进行, 术前进行还是术后进行目前尚无定论。对于肛瘘相关的黏液腺癌的治疗及预后还需大量的临床病例报道。本例患者表现为局部早中期肿瘤, 无明显转移征象, 肿瘤未侵犯肛管直肠, 因此术前未进行辅助放化疗。术前未进行辅助放化疗的第二个原因是黏液性结直肠癌对放化疗的反应较差。患者好转出院后未返院行放化疗, 考虑术后存在复发的可能, 叮嘱患者定期来院复查。

早期诊断和治疗是决定肛瘘相关黏液腺癌患者预后的关键。由于该病起病隐匿, 临床症状不典型, 临床医生大多考虑肛瘘、肛周脓肿、肛周囊肿等, 忽略了肛瘘癌变的可能, 一经诊断往往已发展为中晚期肿瘤。临床医生应加强对该疾病的认识, 加强对肛瘘患者的术后随访, 对于久治不愈、反复发作、术口愈合不良的肛瘘患者, 应怀疑肛瘘癌变的可能并行组织病理学检查以明确诊断。由于瘘管相关性肛周黏液腺癌临床罕见, 容易被漏诊、误诊, 希望该病例分享能让临床医师对于类似的患者考虑肛周黏液腺癌的可能, 尽早完善组织病理学检查, 以免漏诊、误诊, 降低死亡率, 提高患者预后。近年来随着诊疗技术的提高有越来越多关于瘘管相关性肛周黏液腺癌的文献报道, 但仍未形成统一的诊疗指南, 这是所有肛肠医生当前需要努力的方向。

声 明

经昆明医科大学第二附属医院医学伦理委员会审核通过, 伦理号: 审-PJ-科-2025-70。

参考文献

- [1] Rosser, C. (1934) The Relation of Fistula in Ano to Cancer of the Anal Canal. *Trans Am Proc Soc*, **35**, 65-71.
- [2] Heriot, A.G. (2020) Whither Anal Cancer? *British Journal of Cancer*, **122**, 733-734. <https://doi.org/10.1038/s41416-019-0690-4>
- [3] Van der Zee, R.P., Richel, O., De Vries, H.J., et al. (2013) The Increasing Incidence of Anal Cancer: Can It Be Explained by Trends in Risk Groups? *The Netherlands Journal of Medicine*, **71**, 401-411.
- [4] Laohawetwanit, T., Hareerak, T., Thamwongsul, C. and Boon-Ing, N. (2021) Extramucosal Anal Canal Adenocarcinoma, Non-Anal Gland Type, and Non-Fistula-Associated with Mucinous Appearance: A Recently Described Diagnostic Entity. *Pathology International*, **71**, 715-718. <https://doi.org/10.1111/pin.13146>
- [5] Deruyter, L., Venken, R. and Maetens, M. (2014) Perianal Mucinous Adenocarcinoma Arising from a Chronic Fistula-in-Ano. *Acta Chirurgica Belgica*, **114**, 410-413. <https://doi.org/10.1080/00015458.2014.11681053>
- [6] Alvarez-Laso, C.J., Moral, S., Rodríguez, D., Carrocera, A., Azcano, E., Cabrera, A., et al. (2017) Mucinous Adenocarcinoma on Perianal Fistula. A Rising Entity? *Clinical and Translational Oncology*, **20**, 666-669. <https://doi.org/10.1007/s12094-017-1750-y>
- [7] Kotsafti, A., Scarpa, M., Angriman, I., Castagliuolo, I. and Caruso, A. (2021) Fistula-Related Cancer in Crohn's Disease: A Systematic Review. *Cancers (Basel)*, **13**, Article No. 1445. <https://doi.org/10.3390/cancers13061445>
- [8] Panés, J. and Rimola, J. (2017) Perianal Fistulizing Crohn's Disease: Pathogenesis, Diagnosis and Therapy. *Nature Reviews Gastroenterology & Hepatology*, **14**, 652-664. <https://doi.org/10.1038/nrgastro.2017.104>
- [9] Ilbawi, A.M., Simianu, V.V., Millie, M. and Soriano, P. (2015) Wide Local Excision of Perianal Mucinous Adenocarcinoma. *Journal of Clinical Oncology*, **33**, e16-e18. <https://doi.org/10.1200/jco.2012.48.5722>

- [10] Jee, S.L., Amin-Tai, H., Fathi, N.Q. and Jabar, M.F. (2018) Perianal Mucinous Adenocarcinoma Diagnosed by Histological Study of Anorectal Abscess with Fistula. *ACG Case Reports Journal*, **5**, e21. <https://doi.org/10.14309/crj.2018.21>
- [11] Koizumi, M., Matsuda, A., Yamada, T., Morimoto, K., Kubota, I., Kubota, Y., *et al.* (2023) A Case Report of Anal Fistula-Associated Mucinous Adenocarcinoma Developing 3 Years after Treatment of Perianal Abscess. *Surgical Case Reports*, **9**, Article No. 159. <https://doi.org/10.1186/s40792-023-01743-3>
- [12] Ong, J., Jit-Fong, L., Ming-Hian, K., Boon-Swee, O., Kok-Sun, H. and Eu, K.W. (2007) Perianal Mucinous Adenocarcinoma Arising from Chronic Anorectal Fistulae: A Review from a Single Institution. *Techniques in Coloproctology*, **11**, 34-38. <https://doi.org/10.1007/s10151-007-0322-5>
- [13] 陈志康, 陈子华, 伍韶斌, 等. 慢性肛瘘癌变: 附 6 例临床分析[J]. 中国普通外科杂志, 2006(10): 769-771.
- [14] Baars, J.E., Kuipers, E.J., Dijkstra, G., Hommes, D.W., de Jong, D.J., Stokkers, P.C.F., *et al.* (2011) Malignant Transformation of Perianal and Enterocutaneous Fistulas Is Rare: Results of 17 Years of Follow-Up from the Netherlands. *Scandinavian Journal of Gastroenterology*, **46**, 319-325. <https://doi.org/10.3109/00365521.2010.536251>
- [15] Khalafi, S., Riddle, M., Harper, B. and Fikfak, V. (2023) Perianal Mucinous Adenocarcinoma Found Incidentally from Perianal Mass. *Cureus*, **15**, e48314. <https://doi.org/10.7759/cureus.48314>
- [16] Cenac, L.A., Xiao, P. and Asarian, A. (2020) Incidental Discovery of Mucinous Adenocarcinoma from a Suspected Inflammatory Perianal Mass. *Journal of Surgical Case Reports*, **2020**, rjz413. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjz413>
- [17] Luo, C., Cen, S., Ding, G. and Wu, W. (2019) Mucinous Colorectal Adenocarcinoma: Clinical Pathology and Treatment Options. *Cancer Communications (London)*, **39**, 1-13. <https://doi.org/10.1186/s40880-019-0361-0>
- [18] Hama, Y., Makita, K., Yamana, T. and Dodanuki, K. (2006) Mucinous Adenocarcinoma Arising from Fistula in Ano: MRI Findings. *American Journal of Roentgenology*, **187**, 517-521. <https://doi.org/10.2214/ajr.05.0011>
- [19] Prasad, S.N., Razik, A., Siddiqui, F. and Lal, H. (2018) Mucinous Adenocarcinoma Arising from Chronic Perianal Fistula Mimicking Horseshoe Abscess. *BMJ Case Reports*, **2018**, bcr-2017-223063. <https://doi.org/10.1136/bcr-2017-223063>
- [20] Ho, C.M., Tan, C.H. and Ho, B.C. (2012) Clinics in Diagnostic Imaging (143). Perianal Mucinous Adenocarcinoma Arising from Chronic Fistula-in-Ano. *Singapore Medical Journal*, **53**, 843-849.
- [21] Gkegkes, I.D., Milionis, V., Goutas, N., Mantzoros, I., Bourtzinakou, A.A. and Stamatiadis, A.P. (2024) Perianal Mucinous Adenocarcinoma: A Case Report and a Systematic Review of the Literature. *Journal of Gastrointestinal Cancer*, **56**, Article No. 6. <https://doi.org/10.1007/s12029-024-01116-5>
- [22] Sunami, E., *et al.* (2022) Diagnosis and Surgical Treatment for Carcinoma Associated with Anal Fistula. *Journal of Clinical Surgery*, **77**, 962-966.
- [23] Santos, M.D., Nogueira, C. and Lopes, C. (2014) Mucinous Adenocarcinoma Arising in Chronic Perianal Fistula: Good Results with Neoadjuvant Chemoradiotherapy Followed by Surgery. *Case Reports in Surgery*, **2014**, Article ID: 386150. <https://doi.org/10.1155/2014/386150>
- [24] Anwar, S., Welbourn, H., Hill, J. and Sebag-Montefiore, D. (2013) Adenocarcinoma of the Anal Canal—A Systematic Review. *Colorectal Disease*, **15**, 1481-1488. <https://doi.org/10.1111/codi.12325>
- [25] Yang, B., Shao, W., Sun, G., Chen, Y. and Huang, J. (2009) Perianal Mucinous Adenocarcinoma Arising from Chronic Anorectal Fistulae: A Review from Single Institution. *International Journal of Colorectal Disease*, **24**, 1001-1006. <https://doi.org/10.1007/s00384-009-0657-7>
- [26] Oberholzer, K., Menig, M., Kreft, A., Schneider, A., Junginger, T., Heintz, A., *et al.* (2012) Rectal Cancer: Mucinous Carcinoma on Magnetic Resonance Imaging Indicates Poor Response to Neoadjuvant Chemoradiation. *International Journal of Radiation Oncology Biology Physics*, **82**, 842-848. <https://doi.org/10.1016/j.ijrobp.2010.08.057>
- [27] Causey, M.W., Steele, S.R., Maykel, J., Champagne, B. and Johnson, E.K. (2012) Surgical Therapy for Epidermoid Carcinoma of the Anal Canal: An NSQIP Assessment of Short-Term Outcomes. *Journal of Surgical Research*, **177**, 235-240. <https://doi.org/10.1016/j.jss.2012.05.005>
- [28] Pai, V.D., Jatal, S., Engineer, R., Ostwal, V. and Saklani, A.P. (2015) Multidisciplinary Management of Colorectal Adenocarcinoma Associated with Anal Fistula: An Indian Series. *Colorectal Disease*, **17**, O240-O246. <https://doi.org/10.1111/codi.13100>
- [29] Nushijima, Y., Nakano, K., Sugimoto, K., *et al.* (2014) A Case of Primary Carcinoma Associated with Anal Fistula. *Gan to Kagaku Ryoho*, **41**, 1872-1874.
- [30] Flam, M., John, M., Pajak, T.F., Petrelli, N., Myerson, R., Doggett, S., *et al.* (1996) Role of Mitomycin in Combination with Fluorouracil and Radiotherapy, and of Salvage Chemoradiation in the Definitive Nonsurgical Treatment of Epidermoid Carcinoma of the Anal Canal: Results of a Phase III Randomized Intergroup Study. *Journal of Clinical Oncology*, **14**, 2527-2539. <https://doi.org/10.1200/jco.1996.14.9.2527>
- [31] Hongo, K., Kazama, S., Sunami, E., *et al.* (2013) Perianal Adenocarcinoma Associated with Anal Fistula: A Report of 11 Cases in a Single Institution Focusing on Treatment and Literature Review. *Hepatogastroenterology*, **60**, 720-726.

-
- [32] Inoue, T., Sekido, Y., Ogino, T., Hata, T., Miyoshi, N., Takahashi, H., *et al.* (2023) Resection of Anorectal Fistula Cancer Associated with Crohn's Disease after Preoperative Chemoradiotherapy: A Case Report. *Surgical Case Reports*, **9**, Article No. 197. <https://doi.org/10.1186/s40792-023-01778-6>
- [33] Chrysikos, D., Mariolis-Sapsakos, T., Triantafyllou, T., Karampelias, V., Mitrousias, A. and Theodoropoulos, G. (2018) Laparoscopic Abdominoperineal Resection for the Treatment of a Mucinous Adenocarcinoma Associated with an Anal Fistula. *Journal of Surgical Case Reports*, **2018**, rjy036. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjy036>