

仙骨前部 Dermoid cyst の 1 例

松阪市民病院泌尿器科 (科長 : 桜井正樹)

神田 英輝, 桜井 正樹

三重大学医学部付属病院泌尿器科

有 馬 公 伸

A CASE REPORT OF PRESACRAL DERMOID CYST

Hideki KANDA and Masaki SAKURAI

From the Department of Urology, Matsusaka Municipal Hospital

Kiminobu ARIMA

From the Department of Urology, Mie University School of Medicine

A case report of a presacral dermoid cyst in an adult. A 39-year-old man visited our hospital because of lower abdominal pain. A soft mass was palpable on the right side wall of rectum. Computed tomographic (CT) scan, transrectal ultrasonography and MR imaging showed presacral cystic tumor with a diameter of 10 cm. The tumor was resected by using a sacral approach. It contained muddy substance and hairs. Histopathological examination showed that the tumor wall was made of stratified squamous epithelium with skin appendage. Hence, it was diagnosed as a dermoid cyst. After operation, wound infection and dehiscence occurred, but it healed after conservative treatment. Complete excision of developmental cysts is advised because of possibility of malignancy and infection.

(Acta Urol. Jpn. 50 : 817-820, 2004)

Key words : Presacral tumor, Dermoid cyst

緒 言

今回、われわれは仙骨前部に認められ、経仙骨のアプローチにて摘出した dermoid cyst (類皮嚢胞) の 1 例を経験したので、文献的考察を加えてこれを報告する。

症 例

患者 : 39歳, 男性

主訴 : 下腹部痛

既往歴 : 36歳, 右尿管結石にて他院にて ESWL

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2003年6月21日下腹部痛を自覚し、当院救急外来受診。CTにて骨盤内腫瘍を認め、精査加療目的にて当科入院となった。

入院時現症 : 下腹部に圧痛あり。直腸診にて波動性のある、軟らかい腫瘍を触知したが、同部位に圧痛は認めず。前立腺はクルミ大で異常所見なし。また、排尿障害や排便障害は認めなかった。

入院時検査成績 : WBC 12,900/ μ l, RBC 5.02 $\times 10^6$ / μ l, Hb 15.4 g/dl, Ht 45.1%, Plt 26 $\times 10^4$ / μ l と白血球増多を認めた。GOT 22 IU/l, GPT 37 IU/l, LDH 176 IU/l, T-Bil 1.8 mg/dl, CK 116 IU/l,

AMY 53 IU/l, BUN 17 mg/dl, Cre 0.81 mg/dl, Glu 124 mg/dl CRP 0.2 mg/dl と若干の肝障害、高血糖を認めた。また AFP, β -HCG, CEA, CA19-9, PSA など腫瘍マーカーはいずれも陰性であった。なお, SCC は測定されていなかった。

画像検査所見 : CT にて前立腺後部から直腸右側に嚢胞状腫瘍を認め、頭側は精嚢腺、尾側は坐骨結節のレベルまで腫瘍は存在していた。一部に隔壁および壁肥厚を認めたが造影効果は認められなかった (Fig. 1)。経直腸超音波検査では前立腺右側に内部均一な点状エコーを有する腫瘍を認めた。MRI では腫瘍内容は T1 強調像で low, T2 強調像で iso~high density であった (Fig. 2a, 2b)。また、注腸造影検査では腫瘍により直腸の左方への圧排を認めた。

入院後経過 : 下腹部痛は抗生剤投与にて症状は軽快し、WBC も 6月23日には 6,300/ μ l と改善した。仙骨前部の嚢胞状腫瘍にたいし 7月2日経仙骨アプローチによる腫瘍摘出術を施行した。

術中所見 : Jack Knife position にて、肛門左側から仙骨右側までの斜切開を加え、肛門挙筋を切開し、大殿筋の一部を切開。これにて腫瘍が露出された (Fig. 3)。腫瘍は軟らかく、被膜に覆われた状態であった。直腸に手指を挿入し、これをガイドに腫瘍と

7 cm, 内容は皮脂および毛髪成分が主体であった (Fig. 4). 嚢胞壁は汗腺を含む角化扁平上皮, 筋層構造より形成されており, 異型細胞は認められなかった (Fig. 5). これらの所見から腫瘍は dermoid cyst と診断された.

術後, 創部感染のため一部離解したが, 保存的に治療した. 現在外来にて経過観察中である.

考 察

仙骨前部は前壁が直腸, 後壁が仙尾骨, 上壁が腹膜反転部, 下壁が骨盤筋群, 側方は尿管や内外腸骨血管に囲まれた部位であり, 同部位は後腸, 肛門窩, 神経管, 骨などが胎生期に癒合して形成され, このため様々な腫瘍が発生しえると考えられている¹⁾ 同部位に認められる腫瘍の頻度は入院患者の40,000人に1人²⁾, もしくは直腸鏡を行った患者の0.014%³⁾と報告されており, 比較的に稀な疾患と思われる. Stewartらは仙骨前部の腫瘍を先天性, 炎症性, 神経原性, 骨性, その他に分類しており, 先天性腫瘍が全体の70%を占めていると報告している⁴⁾ 自験例では仙骨前部の dermoid cyst であった.

Dermoid cyst は類皮嚢胞と呼ばれ, 嚢胞形成する mature teratoma の1種として知られている⁵⁾ また, 同様に嚢胞形成する mature teratoma として epidermoid cyst がある. Epidermoid cyst は類表皮嚢胞と呼ばれ, dermoid cyst との相違点は, ともに外胚葉分化を示し他胚葉由来の要素を含まない腫瘍であるが, epidermoid cyst は脂腺, 毛髪, 汗腺などの付属器を含まないものと定義されている⁶⁾ また, 卵巣発生での dermoid cyst は, 稀に悪性変化を来すことがあり, その頻度は0.17~3.6%とされ, 70~80%が扁平上皮癌であり, 15%は腺癌と報告されている⁷⁾

Hawkins らは仙骨前部に認められる先天性嚢胞状腫瘍である dermoid cyst, epidermoid cyst, tailgut cyst (mucus-secreting cyst) を, 臨床上的痔瘻や肛門周囲膿瘍などと誤診されやすい点から developmental cyst としてまとめ, 40例中 dermoid cyst を19例に認めたと報告している⁸⁾ Uhlig らは成人の仙骨前腫瘍63例で developmental cyst は26例であったと報告しており, 仙骨前部に認められる腫瘍ではこれらの疾患が比較的多いようである⁹⁾ 仙骨前部に dermoid cyst が発生する機序として, 1) 神経管の尾骨での痕跡である尾骨窩が萎縮せず残存したために発生する, 2) 肛門は総排泄孔の粘膜が後腸前壁に癒合することにより形成されるが, 後腸後壁が遺残するために嚢胞状腫瘍が発生する, と2通りの機序が考えられている¹⁰⁾ 外傷や直腸手術の既往のために dermoid の迷入が生じることが原因とも考えられるが, 自験例ではそのよ

うな既往はなく, 後天的な原因のためとは考えにくい. また, 初診より3年前に他院にて ESWL を受けているが, この時はレントゲンと経腹の超音波検査での腎の評価のみで, 腫瘍は指摘されていない.

前述のように dermoid cyst は mature teratoma の1種と考えられているが, 仙骨前部の teratoma が発生する機序は dermoid cyst とは異なり, 内胚葉と外胚葉の接点で中胚葉を形成した原始結節が発生4週末に消失せずに残存すると仙尾骨先端に位置するようになり, 原始結節由来の totipotent cell が3胚葉系への分化能を持つようになることが原因と考えられており, この totipotent cell を摘出しないと再発率が増加するため, 摘出術において尾骨の合併切除が勧められている¹¹⁾

仙骨前部の腫瘍による症状は, 腫瘍の周囲臓器圧迫による便秘, 便の狭小化, 頻尿, 排尿困難, 背部痛, 下肢筋力低下, 麻痺, 下肢静脈の鬱血, 発熱, 下腹部痛, 下血, 膿排出など様々であるが無症状であることも多く, 画像検査などで偶然に指摘されることも多いようである^{1, 12, 13)}

Dermoid cyst の画像検査では, 超音波検査では高エコーの成分を持つ内部不均一な充実性もしくは嚢胞状腫瘍として認め, CT では典型的な場合, 嚢胞状腫瘍の内部に CT 値の異なる2つの液体成分を有し, その境界面に円形の脂肪を含む腫瘍が浮遊する像を呈する. 約半数で歯牙や他の石灰化を認め, また dermoid plug と呼ばれる嚢胞壁から突出する皮脂成分からなる円形充実性の腫瘍を81%に認め, 悪性変化は通常この dermoid plug の中に生じ造影剤で造影される. MRI では皮下脂肪と同様に T1, T2 強調像で共に高信号で脂肪抑制画像で信号が低下する. いずれも, 脂肪成分が認められれば dermoid cyst の診断は容易であるが, 認められない場合は困難である¹⁴⁾

Nishie らは, MRI で diffusion-weighted MRI でのケラチンの証明, chemical shift imaging での少量の脂肪の証明することで他の嚢胞状腫瘍との鑑別ができると報告している¹⁵⁾

Developmental cyst に関する治療については, 仙骨前腔の腫瘍は悪性病変の合併^{16, 17)}, 無症状であっても増大してくることによる周囲臓器への圧迫症状, 腫瘍自体の感染の合併の危険があり, また感染すると完全切除が困難となり再発率が高くなることを考慮し, 指摘され次第に外科的切除を行うことが勧められている^{1, 3)} 腫瘍へのアプローチには経仙骨的と経腹的および経仙骨的+経腹的があり, 腫瘍の大きさや悪性病変の合併の有無によりそれらの適応を決めている. Stewart らは腫瘍径が 10 cm 以下のものは経仙骨的アプローチで切除可能としており⁴⁾, Localio らは 8 cm 以上の良性腫瘍や悪性腫瘍の場合には右側臥

位にて経腹+経仙骨アプローチを勧めている¹⁸⁾ 仙骨前部 epidermoid cyst の本邦32例の報告では、大きさ 5 cm 以下の場合全例が経仙骨的に摘出され、10 cm 以上の場合過半数が経腹的に摘出されているとしており、腫瘍の大きさが腫瘍へのアプローチに反映しているようである¹³⁾。自験例では大きさは 10 cm であったが、腫瘍は尾側に位置していたため経仙骨的に摘出しえた。また、尾骨の合併切除に関しては developmental cyst では必ずしも必要としないと思われる。術前の診断にて teratoma との鑑別が困難なため合併切除をしておいた方が無難との意見もあるが¹⁹⁾、自験例では術中病理診断にて dermoid cyst と診断されたため切除はしなかった。また、経仙骨のアプローチは泌尿器科医には不慣れな操作であると思われるが、肛門挙筋の一部である恥骨直腸筋が肛門機能維持に重要であり、これを温存、修復さえすれば術後の排便機能におけるトラブルは少ないようである²⁰⁾ 自験例も、術後創部離解は生じたが、それ以外は順調な経過である。

結 語

仙骨前部に認められた dermoid cyst 1 例を経験した。経仙骨のアプローチにて摘出しえた。

文 献

- 1) Dina LC, Mordechai G, Gideon G, et al.: Presacral tumors: a practical classification and treatment of a unique and heterogenous group of diseases. *Surgery* **133**: 473-478, 2003
- 2) Whittaker LD and Pemberton JD: Tumors ventral to sacrum. *Ann Surg* **107**: 96-106, 1938
- 3) Spencer RJ and Jackman RJ: Surgical management of precoccygeal cysts. *Surg Gynecol Obstet* **115**: 449-452, 1962
- 4) Stewart RJ, Humphreys WG and Parks TG: The presentation and management of presacral tumors. *Br J Surg* **73**: 153-155, 1986
- 5) Stephen SS and Gonzalez FC: Testicular and paratesticular Neoplasm. *Diagnostic surgical pathology*. Vol 2, pp 1455-1486, Paven press, NY, 1989
- 6) 吉田 修, 飛田収一: 腫瘍病理学. ペットサイド泌尿器科学, 診断治療編. 吉田 修編, 第 2 版, pp 435-444, 南江堂, 東京, 1991
- 7) 田村 希, 塚田清二, 笹川 甚, ほか: 当科で経験した dermoid cyst with malignant transformation の 4 例. *産と婦* **67**: 1819-1823, 2000
- 8) Hawkins WJ and Jackman RJ: Developmental cysts as a source of perianal abscesses, sinuses and fistulas. *Am J Surg* **86**: 678-683, 1953
- 9) Uhlig BE and Johnson RL: Presacral tumors and cysts in adults. *Dis Colon Rectum* **18**: 581-596, 1975
- 10) Marvin W, Raymond Z and Douglas AR: Presacral tumors: case report, review of the literature. *Clini Anat* **8**: 227-230, 1995
- 11) Gross RE, Clatworthy HW Jr and Meeker IA: Sarcococcygeal teratomas in infants and children. *Surg Gynecol Obstet* **92**: 341-354, 1951
- 12) Elizabeth WN, Pierluigi P and Patrick JL: Sarcococcygeal teratoma in adults: case reports and a review of the literature. *Cancer* **86**: 1198-1202, 1986
- 13) 中口和則, 古川順康, 陶 文暁, ほか: 前仙骨部 epidermoid cyst の 1 例. *日臨外* **60**: 2502-2506, 1999
- 14) 桑鶴良平, 伊藤省吾, 阿部妹子: 卵巣皮様嚢胞腫. *臨床医 (増刊)* **29**: 1146-1147, 2003
- 15) Akihiro N, Kengo Y, Hiroshi H, et al.: Presacral dermoid cyst with scanty fat component: usefulness of chemical shift and diffusion-weighted MR imaging. *Comp Med Imag and Graph* **27**: 293-296, 2003
- 16) 永野靖彦: 成人仙骨前類皮嚢胞に発生した扁平上皮癌の 1 例. *日臨外会誌* **58**: 295, 1997
- 17) 小泉岐博: 悪性変化をきたした成人前尾骨部類皮嚢腫の 1 例. *日臨外会誌* **58**: 452, 1997
- 18) Localio SA, Eng K and Ranson JHC: Abdominosacral approach for retrorectal tumors. *Ann Surg* **191**: 555-560, 1980
- 19) 江畑智希, 服部龍夫, 小林陽一郎, ほか: 前仙骨部 epidermoid cyst の 1 例. *日臨外会誌* **58**: 2454-2457, 1997
- 20) 小里俊幸, 川上和彦, 馬場正三: 縮小手術—直腸腫瘍に対する局所切除術—. *外科診療 (増刊)* **37**: 89-97, 1995

(Received on April 12, 2004)
(Accepted on July 7, 2004)