症例報告 II

超音波内視鏡検査が有用であった tailgut cyst の 1 例

小木曾 聖¹⁾ 趙 榮濟²⁾ 土井 俊文¹⁾ 田中 順子¹⁾
 真田 香澄³⁾ 河端 秀明³⁾ 高谷 宏樹¹⁾ 濱田 新七⁴⁾

大津市民病院消化器科¹⁾, 洛和会音羽病院消化器病センター²⁾, 京都第二赤十字病院³⁾, 大津市民病院病理科⁴⁾

症例は 39 歳, 女性. 右臀部圧迫感を主訴に当院を受診した. CT および MRI では後直腸部に嚢胞性腫瘤があり, 超音波内視鏡検査では下部直腸後壁側の壁外に多房性で内部が不均一な腫瘤像として観察された. tailgut cyst を強く疑い, 経仙骨的腫瘍摘出術を施行した. 病理組織学的にも合致する所見であり悪性所見は認めなかった. 超音波内視鏡検査は腫瘤内部の詳細な観察が可能であり, 本疾患の有用な補助診断法と考えた.

索引用語: tailgut cyst, 超音波内視鏡

はじめに

Tailgut cyst は, 胎生期に一過性に存在する tailgut の遺残に由来する嚢胞性腫瘤であり, 前方を直腸, 後方を仙骨によって挟まれる後直腸部 (retrorectal space) に生じる. また発生学的異常による嚢胞性腫瘤 (developmental cyst) の一種であり, 悪性例を認めるため診断が重要である. 今回, われわれは各種の画像検査法とくに超音波内視鏡検査 (以下 EUS) で tailgut cyst を強く疑い, 手術を施行した 1 例を経験したので文献的考察を加え報告する.

症 例

症例: 39 歳, 女性.

主訴: 右臀部圧迫感.

既往歴: 卵巣のう腫摘出術 (27 歳時, 36 歳時), 自己免疫性溶血性貧血 (36 歳時に診断).

家族歴: 特記すべき事項なし.

現病歴: 2008 年 9 月頃より右臀部圧迫感が出現したため当院婦人科を受診した. 各種の画像検査で臀部皮下から後直腸部に至る多房性嚢胞性腫瘤を指摘された. 悪性病変を否定できないため手術を勧めたが, 同意を得られず経過観察となった. その後も右臀部圧迫感は持続していたため, 2009 年 1 月に精査目的で当科へ紹介された.

現症: 身長 168cm. 体重 66.2kg. 体温 36.7℃. 血

圧 112/63mmHg. 脈拍 73 回/分, 整. 表在リンパ節触知せず. 心肺所見に異常なし. 腹部は平坦, 軟で圧痛なし. 肝脾腫なし. 臀部正中よりやや右側に腫瘤を触知. 直腸診では 5 ~ 7 時方向に表面平滑な硬い腫瘤を触知した.

血液検査所見: 血液生化学検査では Hb 11.1g/dl と軽度の貧血を認めるのみで, 腫瘍マーカーは CEA, CA19-9, AFP, CA125 すべて正常であった (表 1).

骨盤部造影 CT 検査: 臀部皮下から仙骨前面のやや右側に直腸を前方に圧排する長径約 80mm の嚢胞性腫瘤を認めた. 嚢胞内には石灰化病変は指摘できなかった (図 1).

表 1 血液検査所見

WBC	6,000 /ml	Na	139 mEq/l
RBC	451 × 10 ⁴ /ml	K	4.3 mEq/l
Ht	35.5 %	Cl	105 mEq/l
Hb	11.1 g/dl	BUN	10 mg/dl
MCV	78.7 μm ³	CRE	0.7 mg/dl
MCH	24.6 pg	CRP	0.03 mg/dl
MCHC	31.1 %	Fe	37 g/dl
PLT	24.6 × 10 ⁴ /ml	ferritin	6 ng/ml
GOT	12 IU/l		
GPT	7 IU/l	CEA	0.7 U/ml
LDH	165 IU/l	CA19-9	<1 ng/ml
ALP	125 IU/l	AFP	<3 ng/ml
T-Bil	0.6 mg/dl	CA125	33.1 U/ml
D-Bil	0.2 mg/dl

図1 骨盤部造影CT検査：a（矢状断像），b（横断像）
臀部皮下から仙骨前面にかけて長径約 80mm の嚢胞性腫瘍を認める。

図2 骨盤部MRI検査（T2強調像）：a（矢状断像），b（横断像）
臀部皮下から仙骨前面にかけて長径約 80mm の多房性嚢胞性腫瘍を認める。嚢胞は信号レベルが異なっており，内容液の性状は不均一と考える。

骨盤部MRI検査：臀部皮下から仙骨前面のやや右側に直腸を前方に圧排する長径約 80mm の多房性嚢胞性腫瘍を認めた。T2 強調像では各嚢胞は信号レベルが異っており，内容液の性状は不均一と考えた（図2）。

注腸X線検査：下部直腸後壁側に表面凹凸のある壁外からの圧排像を認めた（図3）。

下部消化管内視鏡検査：下部直腸後壁に凹凸のあ

る壁外からの圧排所見を認めた。粘膜面には異常はなく，また鉗子を用いた内視鏡的触診では硬かった。

EUS：7.5MHz の上部用超音波内視鏡専用機を用いて腫瘍を観察した。腫瘍は横断面では径約 50mm であり下部直腸後壁側の壁外に存在していた。腫瘍は多房性で低および無エコーの嚢胞性成分で構成されていた。また内部に石灰化所見はなく，直腸壁への明らかな浸潤所見も認めなかった（図4）。

図3 注腸 X 線検査：下部直腸後壁側に表面凹凸のある壁外からの圧排像を認める。

(注) △ 低エコーの領域
 ↑ 無エコーの領域

図4 EUS：a（病変口側の超音波像），b（病変肛門側の超音波像）
 腫瘍は径約 50mm で下部直腸後壁側の壁外に存在している。腫瘍は低エコーと無エコーの嚢胞性成分で構成されていた。また内部に石灰化所見はなく、直腸壁への明らかな浸潤所見は認めなかった。

腫瘍が後直腸部に存在していること、多房性で嚢胞ごとに内部性状が異なることより tailgut cyst を強く疑った。悪性例の報告もあるため手術適応と考え、2009 年 3 月に経仙骨的腫瘍摘出術を施行した。

手術所見：全身麻酔下にジャックナイフ体位で尾骨部右側に皮切を加えた。腫瘍は直腸壁に沿って屈曲し真皮直下にまで突出していたが、完全摘除が可

能であった。

摘出標本所見：腫瘍は大きさ約 80×70×45mm であり、隔壁で複数の嚢胞に分離されていた。嚢胞内容は黄褐色水様や灰白色泥状など多彩であった。なお、嚢胞内に歯、骨、毛髪は認めなかった(図 5)。また、嚢胞内容液の CEA は 3,395U/ml と著明な高値を示したが、CA19-9 は 16U/ml であった。

図5 摘出標本（ホルマリン固定後）（長軸に対して垂直な断面，右が頭側，左が尾側）：隔壁で複数の嚢胞に分離されている。嚢胞内容は黄褐色水様のものや，灰白色泥状のものなど様々である。

図6 病理組織像（HE 染色）：嚢胞内は円柱上皮，非角化扁平上皮が混在しており，移行上皮も一部認められる。嚢胞壁は繊維性結合組織からなっているが一部で平滑筋線維が錯綜していた。皮膚付属器成分は認めない。

a：ルーベ像

b：aの①の部分の拡大像（×100）；円柱上皮

c：aの②の部分の拡大像（×200）；重層扁平上皮

d：aの③の部分の拡大像（×100）；移行上皮

病理組織所見：嚢胞内面は一部剥離脱落していたが，円柱上皮，非角化扁平上皮と一部移行上皮からなっていた。嚢胞壁は線維性結合組織で構成されているが，一部で平滑筋線維が錯綜していた。また，皮膚付属器成分や異型細胞は認めなかった。以上よ

り病理組織学的に良性の tailgut cyst と診断した（図6）。

臨床経過：術後は特に合併症なく良好な経過であり，現在に至るまで再発を認めていない。

表 2 Tailgut cyst の本邦報告例

報告者	(年)	診断時年齢・性	症状	最大径 (mm)	嚢胞の性状		良悪性	腫瘍マーカー
木島ら ⁶⁾	(1991)	42・F	肛門部痛	56	多房	漿液状/淡黄色泥状/赤褐色泥状	良性	血清 CA19-9 高値
吉田ら ⁷⁾	(1992)	54・F	臀部腫瘍	55	多房	—	良性	
Fujitaka ら ⁸⁾	(1995)	72・M	血便	25	多房	—	良性	
金子ら ⁹⁾	(1995)	5ヵ月・F	排便異常	—	多房	—	良性	
石井ら ¹⁰⁾	(1995)	6ヵ月・F	臀部腫張	30	多房	—	良性	
竹内ら ¹¹⁾	(1996)	45・F	便秘	60	多房	—	良性	
山本ら ¹²⁾	(1996)	37・M	臀部腫瘍	120	単房	—	良性	
江本ら ¹³⁾	(1998)	37・F	下腹部痛, 便秘	70	単房	—	良性	
Maruyama ら ¹⁴⁾	(1998)	66・F	血便	100	単房	—	悪性(腺癌)	血清 CEA 高値
伊藤ら ¹⁵⁾	(1998)	65・M	下腹部痛	110	多房	ベージュ混濁/灰白色ペースト状	良性	嚢胞内容液 CEA, CA19-9 高値
高須ら ¹⁶⁾	(1999)	40・F	尾骨部痛	50	多房	—	良性	
中川ら ¹⁷⁾	(2000)	61・F	無症状	45	多房	—	良性	
岩川ら ¹⁸⁾	(2001)	70・F	微熱	65	単房	—	悪性(腺癌)	
森谷ら ¹⁹⁾	(2001)	60・M	肛門部痛	40	多房	—	良性	
大場ら ²⁰⁾	(2002)	59・F	臀部圧迫感	85	多房	緑黄色クリーム状	良性	
池田ら ²¹⁾	(2003)	56・M	肛門部圧迫感	50	単房	—	良性	
増田ら ²²⁾	(2003)	57・F	臀部腫瘍	60	多房	灰白色ペースト状	良性	
桐山ら ²³⁾	(2004)	58・F	無症状	—	多房	茶白色泥状	良性	血清 CA19-9 高値
伊藤ら ⁴⁾	(2004)	28・F	臀部痛	30	多房	—	良性	
竹重ら ²⁴⁾	(2004)	56・F	肛門部圧迫感	65	単房	淡黄色クリーム状	良性	
柴尾ら ²⁵⁾	(2006)	52・F	黒色便	135	多房	灰緑黄色クリーム状	良性	
Osawa ら ²⁶⁾	(2006)	59・F	腰痛	80	単房	黄白色顆粒状	良性	血清 CA19-9 高値
尾形ら ²⁷⁾	(2006)	58・F	肛門部違和感	116	多房	白色クリーム状	良性	
鄭ら ²⁸⁾	(2007)	33・F	不整性器出血	97	単房	淡黄色粘液状	悪性(粘液癌)	血清 CA19-9 高値
佐藤ら ²⁹⁾	(2007)	胎生 23 週・F	—	100	単房	—	良性	
山田ら ³⁰⁾	(2008)	50・F	下腹部痛	100	多房	コーヒー残渣様	良性	血清 CA19-9 高値
初貝ら ⁵⁾	(2009)	50・F	無症状	90	多房	褐色粘調	悪性(腺癌)	血清 CEA 高値
三上ら ³¹⁾	(2010)	38・F	臀部圧迫感	42	多房	粘液	良性	
自験例	(2008)	39・F	臀部圧迫感	80	多房	黄茶色水様/灰白色泥状	良性	

考 按

tailgut は、内面を 2～4 層の円柱上皮に覆われた管状構造で、胎生 4 週目頃に後直腸部に一過性に存在し明らかな筋層や漿膜がなく、胎生 6 週のはじめごろ最大となりその後は退行消失する。tailgut cyst は tailgut が遺残し、その内部が落屑した上皮や粘液で満たされてできた嚢胞とされている。嚢胞内面は円柱上皮、扁平上皮、移行上皮など多彩な上皮が混在していることが多く、炎症などによる化生の結果

と考えられている。Hjermastad らは診断基準として一部に円柱上皮か移行上皮を有し、明確な 2 層の筋層や漿膜あるいは神経叢をもたないとしている¹⁾。

Jao ら²⁾は後直腸部に生じる嚢胞性疾患を、①先天性、②炎症性、③神経原性、④骨性、⑤不明に分類している。一方、胎生期の発達異常に伴うものは developmental cyst とも言われ、皮様嚢腫、類皮様嚢腫、tailgut cyst に分類される³⁾。他にも同部位に発生する嚢胞性疾患として奇形腫、重複腸管なども鑑別診断に挙がる⁴⁾。

後直腸部の嚢胞性疾患は悪性例の報告があること、感染や神経圧迫症状などの合併症があることより外科的切除の適応とされる⁵⁾。

医学中央雑誌 (1983-2010, 会議録を除く) で「tailgut cyst」をキーワードとして検索した 28 例と自験例を加えた本邦報告 29 例で臨床的検討を行った (表 2)⁴⁻³¹⁾。

診断時年齢は胎生 23 週から 72 歳, 平均 46 歳であり, 男女比は 1:4.8 と女性に多い。臨床症状としては臀部～肛門部の痛み・圧迫感・違和感・腫張 (11 例), 臀部腫瘍 (3 例), 下腹部痛 (3 例) などであり, 大きさは径 25mm～135mm であった。嚢胞は多房性 20 例および単房性 9 例と, 多房性嚢胞が多く認められた。嚢胞内容物は漿液性, クリーム状, 泥状と多彩である。治療は全例で手術が施行されており, 大部分が経仙骨の手術であった。悪性例は 4 例あり, 3 例が腺癌で 1 例が粘液癌であった。その大きさは 65mm から 100mm であり, うち 2 例は血清 CEA が 1 例は血清 CA19-9 がそれぞれ高値であった。

本例は, 多房性で嚢胞内容物が多彩であり, 内容物の CEA が高値であった。

嚢胞内容物に関する過去の報告では漿液性, クリーム状, 泥状と多彩である^{5,6,15,20,22-28,30,31)}。本症例のように一つの病変の中で複数の異なる性状の内容物が確認された症例は過去に 2 例が報告されている^{6,15)}。一方, 他の後直腸部嚢胞性腫瘍では同様の報告はなく, 今後の症例の集積によっては鑑別の一助となる可能性がある。

嚢胞内容物の CEA については過去に伊藤ら¹⁵⁾が検討している。CEA は癌の特異抗原ではなく, 正常上皮からも産生されており, 循環しない状況下の嚢胞液では高値を示すことは良性の病変であっても矛盾しないと考えられる。

本症例では, EUS を用いて腫瘍の内部性状を詳細に観察することができた。EUS では腫瘍は, 多房性で内部は低から無エコーまで多彩であった。複数のエコーレベルの混在は嚢胞の不均一な構造や性状の異なる内容物を反映していると考えられた。EUS で tailgut cyst を観察した症例は本邦では過去に 2 例報告されている。桐山ら²³⁾は比較的均一な内部エコーを持つ多房性腫瘍であったと記述している。初貝ら⁵⁾は直腸固有筋層に連続し, 隔壁を有する嚢胞性病変であったとし, さらに EUS 下で嚢胞穿刺に

よる細胞診を施行している。細胞診による良悪性の鑑別は治療方針の決定にきわめて有用であるが, 穿刺による腫瘍の播種や感染の可能性もあると考えられる。体表エコーガイド下や CT ガイド下による穿刺も同様のリスクが予想される。嚢胞穿刺の是非については今後のさらなる検討が必要と考える。

結 語

Tailgut cyst の 1 例を経験した。大腸内視鏡で下部直腸後壁側に壁外圧排所見を認めた場合, 本疾患を含めた後直腸部嚢胞性疾患を鑑別診断に挙げる必要がある。また, EUS は腫瘍内部の詳細な性状観察が可能であり, 有力な補助診断法であると考えた。

文 献

- 1) Hjermsstad BM, Helwig EB: Tailgut cysts; report of 53 cases. *Am J Clin Pathol* 89: 139-147, 1988
- 2) Jao SW, Beart RW Jr, Spencer RJ, et al: Retrorectum tumors-MayoClinic Experience, 1960-1979. *Dis Colon and Rect.* 28: 644-652, 1985
- 3) Hawkins WJ, Jackman RJ: Developmental cysts as a source of perianal abscess, sinuses and fistulas, *AM J Surg* 86: 678-683, 1953
- 4) 伊藤正朗, 加瀬 肇, 下山 修ほか: 尾骨部嚢胞性疾患 3 手術例の検討. *日本大腸肛門病会誌* 57: 28-33, 2004
- 5) 初貝和明, 金田 巖, 庄司 勝ほか: Tailgut cyst と考えられた仙骨前嚢胞性病変に腺癌の発生をみた 1 例. *日臨外会誌* 70: 906-911, 2009
- 6) 木島三夫: Tailgut cyst の 1 例. *大腸肛門病会誌* 44: 85-88, 1991
- 7) 吉田 太, 三橋 稔, 原口和久: Tailgut cyst の 1 例. *形成外科* 35: 897-904, 1992
- 8) Fujitaka T, Nakayama H, Fukuda S, et al: A tailgut cyst found accompanying rectal cancer: Report of case. *Surg Today* 25: 65-67, 1995
- 9) 金子道夫, 大川治夫, 岩川真由美ほか: 乳児期に肛門周囲膿瘍として発症後も診断および治療に難渋した tailgut cyst の 1 学童例. *日小外会誌* 31: 59-64, 1995
- 10) 石井 修, 古田靖彦, 坂下吉弘ほか: Tailgut cyst の一乳児例. *日小外会誌* 31: 633-637, 1995
- 11) 竹内謙二, 小西尚巳, 西脇 寛ほか: Tailgut cyst の 1 例. *日臨外医会誌* 57: 189-193, 1996
- 12) 山本貴章, 田中 宝, 竹中能文ほか: Tailgut cyst の 1 成人男性例. *日臨外医会誌* 57: 3091-3094, 1996
- 13) 江本健太郎, 高橋忠照, 山村基成ほか: Tailgut cyst の 1 例. *消化器外科* 21: 115-120, 1998
- 14) Maruyama A, Murabayashi K, Hayashi M, et al: Adenocarcinoma arising in a tailgut cyst: Report of a case. *Surg Today Jpn J Surg.* 28: 1319-1322, 1998
- 15) 伊藤史人, 須崎 真, 水野修吾ほか: Tailgut cyst の 1 例. *日消外会誌* 96: 154-159, 1998
- 16) 高須深雪, 大本俊文, 栗原 毅ほか: Retrorectal space 外に発生した tailgut cyst の 1 例. *臨床放射線* 44: 303-306, 1999

- 17) 中川国利, 鈴木幸正, 豊島 隆ほか: Tailgut cyst の 1 例. 消化器外科 23: 519-523, 2000
- 18) 岩川和秀, 梶原伸介, 亀井義明ほか: Tailgut cyst より発生した腺癌の 1 例. 大腸肛門病会誌 54: 551-556, 2001
- 19) 森谷行利: Tailgut cyst の 1 例. 大腸肛門病会誌 55: 27-31, 2001
- 20) 大場 大, 磯部芳彰, 八木治雄ほか: Tailgut cyst の 1 例. 日臨外医会誌 63: 516, 2002
- 21) 池田克実, 西口幸雄, 大上賢祐ほか: 肛門前壁に発生した retrorectal cyst hamartoma の 1 例: 日外科系連会誌 28: 785-788, 2003
- 22) 増田益功, 大野一英, 舩田吉雄ほか: Tailgut cyst の 1 例. 日臨外医会誌 64: 3216-3220, 2003
- 23) 桐山真典, 金井道夫, 中村從之ほか: CA19-9 高値を示した成人 Tailgut cyst の 1 例. 日消外会誌 37: 87-91, 2004
- 24) 竹重元寛, 上杉尚正, 山口栄一郎ほか: Tailgut cyst の 1 例. 外科 66: 1722-1726, 2004
- 25) 柴尾和徳, 中山善文, 平田敬治ほか: Tailgut cyst の 1 例. 大腸肛門病会誌 59: 11-16, 2006
- 26) Ohsawa T, Tada M, Ishida H: Tailgut cyst Associated With Marker Elevation of Serum Carbohydrate Antigen 19-9: Report of a case. 日外科系連会誌 31: 235-239, 2006
- 27) 尾形頼彦, 三浦連人, 岸田 基ほか: Tailgut cyst の 1 例. 外科 68: 1350-1354, 2006
- 28) 鄭 充善, 池田公正, 北田昌之ほか: 悪性所見を伴った Tailgut cyst の 1 例. 日消外会誌 40: 152-156, 2007
- 29) 佐藤陽子, 鈴木達也, 近藤知史ほか: Tailgut cyst の 1 新生児例. 日小外会誌 43: 746-750, 2007
- 30) 山田幸美, 柳橋 健, 加納正人ほか: CA19-9 の著しい上昇を認めた 1 例. 外科 70: 1257-1261, 2008
- 31) 三上和久, 横山 隆, 古田浩之ほか: 肺分画症を伴った tailgut cyst の 1 例. 消化器外科 33: 1235-1241, 2010

A Case of Tailgut Cyst Clearly Observed by Endoscopic Ultrasonography

Kiyoshi Ogiso¹⁾, Eisai Cho²⁾, Toshifumi Doi¹⁾, Noriko Tanaka¹⁾, Kasumi Sanada³⁾,
Hideaki Kawabata³⁾, Hiroki Takaya¹⁾ and Shinshichi Hamada⁴⁾

¹⁾Department of gastroenterology, Otsu Municipal Hospital,

²⁾Digestive Disease Center, Rakuwakai Otowa Hospital,

³⁾Department of gastroenterology, Kyoto Second Red Cross Hospital,

⁴⁾Department of Pathology, Otsu Municipal Hospital

A 39-year-old female visited our hospital with an oppressive feeling in the right buttock. Computed tomography and magnetic resonance imaging revealed a cystic tumor in the presacral space. Endoscopic ultrasonography showed multilocular cysts with uneven inner contents. A surgical specimen revealed pathological findings consistent with a benign tailgut cyst. Endoscopic ultrasonography is a useful method for preoperatively diagnosing tailgut cyst.

(2011 年 5 月 19 日受付)

(2011 年 8 月 5 日受理)