症例

肛門前壁に発生したretrorectal cyst-hamartomaの1例

大阪市立総合医療センター外科，同 心臓血管外科*，同 病理部**，大阪市立住吉市民病院外科***

池田 克実 西口 幸雄 大上 賢祐*
清水 貞利 小川 佳成 玉森 豊
藤本 泰久*** 東野 正幸 曾和 融生
井上 健**

A Case of a Retrorectal Cyst-hamartoma Located in the Anterior Wall of the Anus

Katsumi IKEDA, Yukio NISHIGUCHI, Kensuke OHUE*,
Sadatoshi SHIMIZU, Yoshinari OGAWA, Yutaka TAMAMORI,
Yasuhisa FUJIMOTO***, Masayuki HIGASHINO, Michio SOWA
and Takeshi INOUE**

Department of Surgery, Cardiovascular Surgery* and Pathology**, Osaka City General Hospital

Department of Surgery, Osaka City Sumiyoshi Hospital***

患者は56歳の男性で，肛門部腫瘍を主訴に当科を受診した。肛門前壁より肛門外に突出する径3 cm大の可動性良好な腫瘍を認め，CT・MRI粘液成分を含んだ嚢胞性腫瘍と診断された。腰椎麻酔下に腫瘍摘出術を施行，腫瘍は外肛門括約筋にまで達していた。摘出標本の剖面では，淡黄色，無臭のやや粘性の液体が充満しており，病理学的検討では嚢胞壁は異型性の乏しい扁平上皮や粘液を有する上皮，さらに線毛上皮も認められretrorectal cyst-hamartoma（以後RCH）の診断であった。retrorectal space以外に発生したRCHは本邦でもわずかに報告されているが，肛門前壁に発生した例はなく文献的考察を加えて報告する。

索引用語：retrorectal cyst-hamartoma，尾腸嚢胞（tailgut cyst），会陰部腫瘍（perineal tumor）

緒言

Retrorectal cyst-hamartoma（以後RCH）はtailgut cystとも呼ばれ胎生期に一過性に存在するtailgut（尾腸）の遺残に由来する嚢胞性疾患であり，一般に仙骨前部に生じるとされている。今回肛門前壁より発生し，病理学的にRCHと診断された稀な1例を経験したので，若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

患者：56歳，男性。

主訴：肛門部腫瘍。

既往歴：高血圧症。

現病歴：約6年前に肛門部12時の方向に小豆大の無痛性腫瘍を自覚したが放置していた。その後徐々に腫瘍は増大し胡桃大となり，違和感を生じるようになったため，平成13年2月15日当科受診した。

現症：身長170cm，体重60.6kg，血圧115/77 mmHg，脈拍78/分整，体温35.6℃，胸部腹部に理学的に異常所見なし。肛門部12時に肛門より肛門外に脱出する径3.3cm大の弾性軟の腫瘍を認めた。腫瘍の可動性は良好で表面は平滑，球状であ

Fig.1 Gross findings showed an oval mass covered with normal skin 3.3cm in diameter at the preanal region.

Fig. 2 Pelvic CT scans showed that a homogenous cystic mass 3cm in diameter was observed in the preanal region.

った (Fig. 1)。

入院時血液所見：WBC 9,350/mm³, CRP 0.23 ng/dl, 肝腎機能には異常はみられなかった。

骨盤部CT: 肛門部より突出して3 cm大の腫瘤を認めたが皮膚と同等の均一なdensityで石灰化は認められなかった (Fig. 2)。

骨盤部MRI：肛門部付近より有茎性に臀部に突出する腫瘍が存在し、T1強調画像で低信号、T2強調画像では高信号で少量の粘液等を含んだcystic massが考えられた (Fig. 3)。

体表超音波検査：腫瘤の内部は均一な低エコーで後方エコーは増強し、cystic tumorの診断であった。

手術所見：肛門腫瘍の診断にて腰椎麻酔下に破石位にて手術を施行した。腫瘍の周囲の皮下にエピネフリン添加1%キシロカイン液を注入したのち12時方向に環状切開を加え腫瘍を牽引しつつ皮

膚切開を9時～3時まで延長し、皮下を外肛門括約筋が露出する層にて剝離し、皮膚とともに腫瘤を摘出した。12時の方向にて腫瘤は外肛門括約筋にまで達していた。12時の皮膚はドレナージ創とし、その他の部分は縫合閉鎖した。

摘出標本：3.7×2.8cm大で、内容は無臭で淡黄色、やや粘性のある不透明な液体が充満し、毛髪や骨、軟骨は認められなかった (**Fig. 4**)。

病理組織学的所見：異型性の乏しい重層扁平上皮に被覆された肛門粘膜を認め、上皮下には大きく拡張した囊胞状の構造を認めた。囊胞壁は、異型性の乏しい重層扁平上皮や粘液を含んだ上皮、さらに線毛上皮等に内面が被覆され、壁の一部には平滑筋層が認められた (**Fig. 5**)。奇形種を疑わせる組織成分や絨毛や陰窩等の構造物もなく、悪性所見も認められなかった。RCHに合致する所見であった。

術後経過：術後8日目に軽快退院し、以後現在まで再発は認めていない。

考 察

Retrorectal cyst-hamartoma (RCH) はtailgut vestiges, myoepithelial hamartoma of the rectum, tailgut cyst, developmental cyst, rectal cystと同義語であり胎生期に一過性に存在する尾腸 (tail gut) の遺残に由来する嚢胞性病変である。Retrorectal spaceに発生し、組織学的には腸管型上皮の存在および明確な筋組織または漿膜を有さないものとされている¹⁾。Retrorectal spaceとは、前方を直腸、後方を仙骨、頭側は腹膜鰓転部、尾側は肛門挙筋に囲まれる仙骨前腔を指し、このretrorectal spaceおよびperianal areaにて鑑別さ

Fig. 3 a) Pelvic MRI showed a low intensity cystic mass with the stalk in the perineal region on T1 weighted image. b) The mass was shown predominantly high signals on T2 weighted image. Inside the cystic mass, the presence of a mucus was suspected.

Fig. 4 The mass measured 3.7×2.8 cm in diameter and the cut surface of the specimen showed two cystic compartment with a yellowish mucinous fluid.

れる腫瘍性病変としては奇形腫，類皮嚢腫，重複腸管，anal gland cystおよびanal gland carcinoma等がある²⁾。

これらは解剖学的位置関係と上皮成分にて鑑別されているがわれわれの経験した症例は，肛門の12時方向より突出する有茎性の腫瘍で肛門括約筋に近接しており，locationとしてはanal gland cyst (以後AGC) が考えやすくVicenteら³⁾もRCHの鑑別としてAGCを挙げ解剖学的発生場所の違いを鑑別としている。しかし，線毛上皮を有する粘液細胞の存在がさらなる鑑別の重要なポイントであるとしており，本症例は嚢胞壁に重層扁平上皮の他に粘液を産生している線毛上皮が認めら

れ，その由来は原始腸管上皮の可能性が高く，解剖学的にはretrorectal spaceとは関連性がないものの病理学的にはretrorectal cyst-hamartomaと診断された。後直腸腔と全く関与しない症例はこれまでに高須ら⁴⁾が肛門挙筋の尾側に発生したtailgut cystを報告しているが肛門の前壁に発生した症例の報告はない。胎生期の後腸(hindgut)は，発生過程で直腸の前方に伸長する尿膜(al-lantois)と後方に伸長する排泄腔(cloaca)が形成されていくが⁵⁾，今回の嚢胞は尿膜ないし排泄腔膜(cloacal membrane)に由来するものではないかと考えられる。Angelら⁶⁾も肛門の前側壁に発生した嚢胞を報告しているが嚢胞壁はciliated

Fig.5 a) Histopathological finding showed that epithelial elements found lining the cyst wall palisades (H. E. stain×40). b) Mucin-producing columnar epithelium (H. E. stain×400). c) Ciliated columnar epithelium with occasional goblet cells (H. E. stain×200).

a
b
c

epitheliumが存在し、排泄腔膜がその発生由来で

はないかと推察している。

臨床症状は腫瘍、疼痛、発熱、血便、排尿困難等であり、約5～10%に悪性化が認められる⁷⁾⁸⁾ため完全切除が望ましいとされる。仙骨前面の嚢胞性病変の鑑別にretrorectal cyst-hamartomaを考慮することはもちろんであるが、本症例のように尿膜ないし排泄腔膜由来の場合には肛門腹側、会陰部に存在する場合もあることも念頭に置く必要があると思われた。

結 語

肛門前壁に発生したretrorectal cyst-hamartomaの1例を若干の文献的考察を加えて報告した。

本症例の病理所見を御教示いただいた東邦大学医学部第1解剖学、澤野啓一先生に深謝いたします。

参考文献

- 1) Campbell WL, Wolff M: Retrorectal cysts of developmental origin. Am J Radiol 117: 307-313, 1973
- 2) Daniel JP: Tailgut Cyst (Retrorectal Cyst Hamartoma): Case Report and Review. Mount Sinai J Med 57: 249-252, 1990
- 3) Vicente M, Josefina A, Jse F, et al: Retrorectal cyst-Hamartomas, Report of two cases with adenocarcinoma developing in one, Am J Surgical Pathol 6: 707-714, 1982
- 4) 高須深雪, 大本俊文, 栗原 毅他: Retrorectal space外に発生したTailgut cystの1例. Jpn J Clin Radiol 44: 303-306, 1999
- 5) Moore KL: Moore人体発生学. 星野一正訳, 第3版, 医歯薬出版, 東京, 1977, p251-252
- 6) Angel O, Emilio B: Ciliated Cyst of the Perineal Skin. Am J Dermato 19: 93-96, 1997
- 7) Hjernstad BM, Helwig EB: Tailgut cysts: Report of 53 cases. Am J clin Pathol 89: 139-147, 1988
- 8) 森谷行利: Tailgut cystの1例, 日本大腸肛門病会誌55: 27-31, 2002