症例

成人（思春期）の仙尾部嚢胞性奇形腫の1例

埼玉医科大学総合医療センター外科

中 田 博 石 田 秀 行 横 山 勝
橋 本 大 定

A Case Report of Adult Sacrococcygeal Teratoma

Hiroshi NAKADA, Hideyuki ISHIDA, Masaru YOKOYAMA
and Daijo HASHIMOTO

Department of Surgery, Medical Center, Saitama Medical School

仙骨前部に発生する成人（思春期以降）奇形腫はきわめて稀な疾患である。今回、男子高校生に認められたので文献的考察を加えて報告する。症例は16歳、男性。発熱と肛門痛を主訴に他院を受診。直腸背側の粘膜下膿瘍の診断で、2回の経肛門的穿刺排膿を受けていた。その後も微熱が続いたため、当科紹介入院。骨盤CTで最大径5 cmの多房性嚢胞を、MRI（T2強調画像）検査で第3仙椎から尾骨にかけて直腸を取り囲むように多房性の高信号領域を認めた。仙尾部嚢胞性病変と診断し、経仙骨のアプローチで手術を行った。腫瘍は強固に直腸後側壁に癒着しており、腫瘍を尾骨とともに可及的に摘出したが、男性性機能の完全温存を目的に、第4仙骨より高位の腫瘍壁は摘出せずに焼灼した。切除標本の組織学的検索では成熟した3胚葉成分を認め、成熟奇形腫と診断した。術後6カ月経過した現在、再発の兆候を認めていない。

索引用語：成人仙尾部奇形腫（sacrococcygeal teratoma in adult）

はじめに

成人の仙尾部奇形腫は稀な疾患である。本疾患の悪性の頻度は低い^{1)~9)}が、しばしば炎症ないし瘻孔形成を伴うことと、直腸周囲への腫瘍の広がりや癒着などから、術式の選択が問題となる^{1)~9)11)}。今回、他院で直腸粘膜下膿瘍として治療されていた男子高校生に発生した仙尾部嚢胞性奇形腫に対し、男性性機能温存に配慮した術式を選択した1切除例を経験したので報告する。

症 例

患 者：16歳、男性。

主 訴：発熱、肛門痛。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：アトピー性皮膚炎。

現病歴：平成14年9月に発熱、肛門痛を主訴に近医を受診した。直腸指診で直腸背側の粘膜下膿瘍と診断され、経肛門的に穿刺・排膿を2回受けた。その後も約1カ月間微熱が続いたため、当科を紹介受診した。

入院時現症：体格中等度、栄養良好、腹部は平坦、軟で、肝、脾、腫瘤を触知しなかった。直腸診で下部直腸後壁に、圧痛を伴う弾性軟の低隆起性病変を触知した。

入院時検査所見：血液生化学一般検査では、白血球数の増多（10300/mm³）、CRP値の軽度上昇（2.2mg/dl）以外に、異常所見を認めなかった。腫瘍マーカーではCEA 1.5ng/ml（cutoff値：6.7 ng/ml）、 α -FP測定感度以下（cutoff値：20ng/

Fig. 1 The middle to lower rectum is shown to be dorsally deviated in barium enema.

Fig. 2 Computed tomography demonstrating presacral cystic mass.

ml), CA19-9 4 U/ml (cutoff値: 37U/ml) と異常を認めなかった。

注腸造影検査: 上部直腸は後壁から軽度の圧排を認めた (Fig. 1)。

骨盤CT: 最大径 5 cm の隔壁を伴った多房性嚢胞を認めた (Fig. 2)。直腸との境界は不鮮明で炎症による変化を疑わせた。

骨盤MRI: 第 3 仙椎から尾骨にかけて直腸を圧排し、直腸を取り囲むように最大径 5 cm の隔壁を伴った多房性腫瘍を認めた。この腫瘍性病変は T1 強調画像で低信号、T2 強調画像で高信号を

Fig. 3 A multiple cystic lesion is demonstrated on the ventral side of the sacrum below the lower margin of S2 in magnetic resonance imaging (T2-weighted).

Fig. 4 The transsacral approach exposing the dorsal surface of the cystic lesion.

示した (Fig. 3)。

以上より仙尾部嚢胞性病変と診断し、手術を施行した。

手術所見: 全身麻酔下、Jack-knife体位とし経仙骨的に手術を開始した。仙尾関節で尾骨を切除し、嚢胞性病変に到達した (Fig. 4)。その下端は

Fig. 5 Macroscopic appearance of the part of the resected specimen. Mucosal surface is seen (arrow).

Fig. 6a, 6b, 6c, 6d Photomicrograph showing the components of intestinal epithelium (6c), sebaceous glands and stratified ciliated epithelium (6a, 6b) smooth muscles (6b), and central nervous system (6b). (6a, b: HE×40. 6c, d: HE×100).

a	b
c	d

恥骨直腸筋直上で、直腸の側方・後方と嚢胞壁には強固な癒着が認められ、境界も不明瞭であった。嚢胞を一塊として切除することは困難と判断し、第5仙椎下端から尾側に嚢胞壁を縦切開したところ、黄白色の粘稠な液体が流出した。内腔壁は白色・平滑で悪性化を疑わせる所見は認められなかった。まず、第5仙椎以下の嚢胞を分割して切除したが、直腸後壁との間の癒着はきわめて強固であった。第5-第4仙椎の高さで嚢胞壁背側正中と仙骨前面との間の剥離を開始したが、両側方への剥離も強度の癒着のため困難と判断し、残存嚢胞

Fig. 7 No evident recurrence is seen in post-opmagnetic resonance imaging 6 months later (T1-weighted).

壁の上皮様成分のみ分割切除し、不完全切除と思われる部位には電気メスによる焼灼を加え、手術を終了した (Fig. 5)。

病理組織所見：切除標本の嚢胞壁は内胚葉成分である多列腺毛上皮 (Fig. 6a, 6b) からなり、腸管粘膜も認めた (Fig. 6c)。また外胚葉成分からなる中枢神経系組織 (Fig. 6d)、皮脂腺 (Fig. 6a)、中胚葉成分からなる平滑筋の増生を認めたため (Fig. 6b)、成人の嚢胞性奇形腫と診断した。

術後経過は良好で第12病日に退院し、術後6カ月の現在、再発を認めていない (Fig. 7)。また、勃起・射精障害も認めていない。

考 察

成人の奇形腫は稀な疾患であり、本邦では1997年までに雪上ら¹⁾が29例を集計しているにすぎない。その後2001年までに少数ながら報告例があり、本症例は第33例目と考えられる¹⁾⁻⁹⁾。年齢は14~57歳、男女比 (1例不明) は4:27で女性に多い。成人の奇形腫の報告例が少ない理由として、

後方型発育が多い新生児や乳児の仙尾部奇形腫は良・悪性にかかわらず発見されやすく、手術が行われることが多い（発見されない場合は高率に悪性変化し、予後不良である）。一方、発見されにくい前仙骨型や亜鈴型では、悪性変化することなく緩徐に増大したわずかな症例のみが、成人例として報告されることが大きな理由と考えられている。

本症例のような仙骨前面の嚢胞性病変の鑑別診断としては、（嚢胞性）奇形腫、類上皮嚢胞(epidermoid cyst)、類皮嚢胞(dermoid cyst)、tailgut cyst、直腸重複嚢胞(duplication cyst)などがある。これらの確定診断は組織学的診断のみで得られ、術前の画像診断などで鑑別することは困難とされている。

嚢胞性奇形腫は成熟した三胚葉成分からなり、嚢胞の内面の大部分は表皮様上皮で裏打ちされ、皮膚付属器が多い。つづけて類表皮嚢胞、類皮嚢胞は外胚葉成分よりなり、前者は皮膚および皮膚付属器の成分を有し、後者は扁平上皮で構成され角化物が認められる。tailgut cystは扁平、円柱、立方、腺毛、移行上皮などの種々の上皮をもつことがあり、平滑筋を有することがあるが完全な2重構造をもつことはない、直腸重複嚢胞は腸管壁の完全な構造として2層の平滑筋や漿膜を有することが特徴的組織学的所見である。いずれにしてもこれらの病変の悪性変化の頻度は低い。ちなみに、本邦での成人の奇形腫の悪性例は33例中4例(12%)^{1)~9)}、tailgut cystでは森谷¹⁰⁾によると20例中2例(10%)である。

小児の奇形腫と異なり、成人奇形腫の悪性変化に有用な腫瘍マーカーはないが、tailgut cystの悪性化ではCEAが上昇することが知られている。今回の症例では腫瘍マーカーに異常値を認めず、画像上嚢胞壁に悪性変化を示唆するような充実性成分を認めなかったことから、確定診断はできないものの、基本的には良性の嚢胞性疾患を念頭に手術を予定した。

手術のアプローチとして腹式、腹仙骨式、仙骨式、腹会陰式などがあげられる。ちなみに、成人奇形腫は比較的大きく、高度癒着と易出血性のため困難な手術となることが多いと報告されてい

る^{1)~9)}。Stewartら¹¹⁾は10cm以下のものは、経仙骨的に十分切除可能と述べている。今回の症例では第3仙椎の高さまで嚢胞壁が張り出していたので、腹仙骨式アプローチによる切除も考慮したが、思春期の男子であることを考慮（腹腔操作による下腹神経への障害が発生し性機能の失われる可能性）し、腹膜翻転部以下の直腸両側に近接する骨盤神経叢と、通常第2, 3, 4前仙骨孔から骨盤神経叢に至る骨盤内臓神経がもっとも確実に温存される方法を選択した。

この選択は術前に悪性を示唆する所見に乏しかったこと、直腸癌の手術の場合、全自律神経を温存しても完全な男性性機能の温存は平均70—82%¹²⁾¹³⁾¹⁴⁾に得られるにすぎないことを、保護者に十分説明した上で、最終的に決定したものである。結果的に男性性機能は温存されたと考えられ、術後の観察期間は短いものの、画像上も再発の兆候を認めていない。Lackら¹⁵⁾の報告によると仙尾部成熟型奇形腫の切除後約40年経過した後に悪性変化した症例も報告されており、今回の症例でも長期にわたるfollow-upが必要であることはいうまでもない。

Grossら¹⁶⁾やDonnellanら¹⁷⁾の報告によると尾骨を切除した群では再発がなく、非切除群ではそれぞれ37%, 24%に再発がみられたとし、本疾患に対してはその発生学的見地から、尾骨を切除することを推奨している。経仙骨式アプローチでは尾骨切除が容易に行われるので、そのような観点からも有用である。

結 語

思春期男子に認めた嚢胞性奇形腫の切除に際し、男性性機能温存を優先した経仙骨アプローチを選択した1例を経験したので報告した。

参考文献

- 1) 雪上晴弘, 片岡 誠, 田中宏紀他: 経腹仙骨術式により完全切除し得た成人の仙尾部奇形腫の一例. 名古屋市立病院紀要: 69-71, 1997
- 2) 岩澤智宏, 原田征行, 植山和正他: 前仙骨部に発生した奇形腫の1例. 東北整災紀要45: 22-25, 2001

- 3) 青山浩幸, 丸田守人, 前田耕太郎他: 術式決定に
ヘリカルCTが有用であった成人仙尾部奇形腫の
一例. 日本大腸肛門病会誌54: 267-272, 2001
- 4) 権藤 忠, 出沢 明, 阿部哲士他: 腰部硬膜内馬
尾神経に発生したcystic teratomaの1例. 関東整
災誌28: 90-93, 1997
- 5) 吉岡秀夫, 天野祐一, 辰巳一郎他: 成人仙尾部奇
形腫の2例. 整形外科41: 1792-1796, 1990
- 6) 日野原 徹, 狩野卓夫, 小松健治他: 成人前仙骨
部奇形腫の1例. 島根医学9: 120-122, 1989
- 7) 瀬分 均, 村上義昭, 藤本三樹夫他: 成人の前仙
骨部成熟奇形腫の1例. 日消外会誌21: 2447-
2450, 1988
- 8) 名越淳介, 竹内 尚, 田中規文他: 成人の仙骨前
悪性奇形腫の1例. 臨外42: 1711-1714, 1987
- 9) 末岡 均, 荒井 徹, 木村 厚他: 成人の仙骨前
成熟奇形腫の一治験例. 日大医誌40: 439-444,
1981
- 10) 森谷行利: Tailgut cystの1例. 日本大腸肛門病
会誌55: 27-31, 2002
- 11) Stewart RJ, Humphreys WG, Parks TG, et al:
The presentation and management of presacral
tumors. Br J Surg 73: 153-155, 1986
- 12) 小島一幸, 榎本雅之, 井ノ口幹人他: 直腸癌に対
する自律神経温存腹腔鏡補助下直腸前方切除術.
手術56: 745-751, 2002
- 13) 森 武生, 高橋慶一, 安野正道: QOLを重視した
自律神経温存術. 手術54: 1971-1978, 2000
- 14) 前田耕太郎, 丸田守人, 内海俊明他: 自律神経温
存手術と術後排尿・性功能. 外科59: 525-529,
1997
- 15) Ernest E. Lack, Russel S. Glaun, Lawrence G. :
Heft Late Occurrence of Malignancy Follow-
ing Resection of a Histologically Wature Sa-
crococcygeal Teratoma Arch Pathol Lab Med
117: 724-728, 1993
- 16) Gross RE, Clatworthy HW Jr, Meeker IA Jr, et
al: Sacrococcygeal teratomas in infants and
children. A report of 40 cases. Surg Gynecol
Obstet 92: 341-350, 1951
- 17) William Donnellan, Orver Swenson: Benign
and malignant sacrococcygeal teratomas. Sur-
gery 64: 834-846, 1968