症例報告

子宮内膜症との鑑別を要し、腹腔鏡下に摘出した直腸後腔における
Developmental cystの2例三重県立総合医療センター 産婦人科¹⁾三重大学病院 産科婦人科²⁾小田日東美¹⁾、田中浩彦¹⁾、秋山 登¹⁾、徳山智和¹⁾、南 結^{1,2)}、
中野譲子¹⁾、小林良成¹⁾、井澤美穂¹⁾、朝倉徹夫¹⁾、谷口晴記¹⁾Laparoscopic surgical treatment of two cases of retrorectal space
developmental cysts, preoperatively suspected to be endometrial cystsHitomi Oda¹⁾, Hirohiko Tanaka¹⁾, Noboru Akiyama¹⁾, Tomokazu Tokuyama¹⁾,
Yuki Minami^{1,2)}, Masako Nakano¹⁾, Yoshinari Kobayashi¹⁾, Miho Izawa¹⁾,
Tetsuo Asakura¹⁾, Haruki Taniguchi¹⁾Department of Obstetrics and Gynecology, Mie Prefectural General Medical Center¹⁾,Department of Obstetrics and Gynecology, Mie University Hospital²⁾

Abstract

Objective: Various developmental cysts arise in the retrorectal space because the 3 germ layers in this region are involved in fetal development. We encountered 2 patients with developmental cysts in the retrorectal space that were difficult to differentiate from an endometrial cyst before surgery; the cysts were laparoscopically diagnosed and treated.**Patients:** Both patients had a medical history in which an endometrial cyst was suspected; however, when the intra-abdominal cavity was examined, no abnormal finding was observed, and the abdomen was closed. In both patients, the presence of endometrial cysts measuring 7 cm on the right side of the rectum were suspected on preoperative magnetic resonance imaging. On laparoscopy, cysts were present in the right posterior region of the rectum in the retroperitoneal space and were excised. Pathological examination identified cystic hamartomas and epidermoid cysts.**Conclusion:** Complete excision is necessary because this lesion may lead to infection and conversion to malignancy. The procedure is performed in the deep extraperitoneal pelvic region, and requires corresponding knowledge and experience with gynecological malignancies; however, laparoscopic surgery may be feasible.**Key words:** developmental cyst in the retrorectal space, endometrial cyst, laparoscopic surgery

緒 言

直腸後腔は胎児期の発生の過程で三胚葉すべての組織が関与する場所であるため、種々のDevelopmental cystが発生する。時にMRIにて内膜症性嚢胞と類似した所見をもつことがあるが、局在が後腹膜腔であるため、手術時の腹腔内観察では診断が困難であり、術前より本疾患の周知が必要である。今回我々は術前に子宮内膜症性嚢胞との鑑別が困難で腹腔鏡下に診断し、治療し得た

直腸後腔のDevelopmental cyst 2症例を経験した。診断と治療に腹腔鏡下手術のスキルが有効であったため、これを報告する。

症 例 ①

38歳の女性で妊娠分娩歴は2経妊2経産であった。他院にて妊娠中に卵巣腫瘍を疑い開腹術を受けたが、腹腔内に腫瘍病変を認めず、何も処置せずに閉腹となった既往があった。現病歴としては、数年前から月経困難症および排便痛が出現し、近

医通院中であった。卵巢腫瘍を指摘され、子宮内膜症の診断でジェノゲストの投与を受けていた。しかし症状の改善を認めないため、手術目的で当院へ紹介受診となった。

経膈超音波検査では子宮右側後方に境界明瞭、内部は低エコーな領域を認めた。またCA19-9、CEA、CA125含め血液検査では異常を認めなかった。MRI検査では、子宮右側直腸後方に脂肪抑制されない、T1強調画像にてやや高信号、T2強調画像にて高信号な径50×70mmの多房性嚢胞を認めた。腫瘍に充実部分は認めなかった（図1）。経膈超音波検査およびMRI検査にて卵巢は同定できなかった。

腫瘍病変は直腸近傍の内膜症性嚢胞を疑い、ダグラス窩は内膜症性の癒着による閉鎖の可能性を考えた。内膜症病巣除去を目的に腹腔鏡下手術を施行した。

手術は、臍部12mmポート1点、左右および正中下腹部5mmポート3点のDiamond型のポート配置とした。子宮と両側付属器周囲には内膜症性の癒着を広範囲に認め、子宮後面から直腸前面も繊維性に癒着し、ダグラス窩は閉鎖していた。卵巢の腫大は明らかではなく、卵巢チョコレートのう胞は認めなかった（図2 a）。まず癒着を剥離し、内性器を正常位置へ戻した。卵巢腫大を認めなかったため、後腹膜腫瘍を疑い、内視鏡外科学会技術認定医（大腸）の監督の下に右尿管と直腸の間の骨盤腹膜を切開、剥離を進めた。内側を直腸と子宮頸部、外側を下腹神経や内腸骨血管、頭側を仙骨、尾側を肛門挙筋で囲まれるスペースに嚢胞性病変を認めた（図2 b）。腫瘍壁を電気メスにて穿破したところ、内容物は黄白色、泥状の液体で、これを可及的に吸引した（図2 c）。腫瘍周囲は硬く線維化しており、癒着剥離は非常に困難

a

b

c

図1 単純骨盤MRI)
a. T1強調画像 axial
b. T2強調画像 axial
c. T2強調画像 sagittal
子宮右側直腸後方にT1強調画像にてやや高信号、T2強調画像にて高信号な径50×70mmの多房性嚢胞を認める。

であったが、腫瘍壁を何度も牽引しつつ、嚢胞壁全体を断片的に摘出した（図2 d）。摘出後（図2 e）は直腸指診とエアリークテストにて直腸壁損傷のないことを確認し、ドレーンを挿入し、手術を終了した。

摘出標本病理学的検査では、嚢胞壁は扁平上皮、立方・円柱上皮、移行上皮、間質は膠原線維・平

滑筋束から構成され、内容物は主に角化物を含んでいたため、過誤腫と診断した（図3）。

術後経過は良好であり、術後4日目に退院となった。術後MRIでは腫瘍の遺残は認められず、直腸は正常位置となった（図4）。

現在術後2年5か月経過するが再発徴候を認めおらず、経過観察中である。

図2 手術所見)
a. 骨盤内は広範囲に内膜症性の癒着が認められた。両側卵巣に明らかな腫大はなかった。
b. 骨盤後腹膜切開部。腫瘍を確認した。
c. 腫瘍壁を穿破したところ、黄白色の内容液を認め、これを速やかに吸引した。
d. 腫瘍周囲は線維化が強く、何度も腫瘍壁を牽引しながら腫瘍を摘出した。
e. 腫瘍摘出後。

図3 病理学的所見) HE染色

a. (×20)

b. (×10)

c. (×10)

d. (×10)

a. 扁平上皮、b. 円柱上皮、c. 移行上皮を認め、d. 腫瘤内容物は角化物が主であった。

図4 術後MRI)

術後2か月のMRIT2強調画像。腫瘍の遺残は認められず、直腸は正常位置となった。

症例②

33歳の女性で妊娠分娩歴は1経妊0経産であった。5年前、左卵巢チョコレート嚢胞に対し、自院にて腹腔鏡下嚢腫核出術を受けたが、術後も超音波検査にて比較的大きなサイズの嚢胞の残存が確認されており、当科通院中であった。1年程前より続く下腹部痛を主訴に当科を再度受診した。

経膈超音波検査では子宮右側後方に径75mmの

低エコーな領域を認めた。血液検査ではSCC2.0 ng/mlと軽度上昇を認めた他は、CA19-9、CEA、CA125は正常範囲内であり、他項目に異常を認めなかった。また、MRI検査では直腸右側にT1強調画像にて低信号、T2強調画像にて高信号な径75mmの多房性嚢胞性腫瘤病変を認めた。充実部を認めず、腫瘤辺縁は明瞭であった(図5)。経膈超音波検査とMRI検査では卵巢の同定はできなかった。

内膜症性嚢胞を疑い、腹腔鏡下手術を施行した。

手術は症例1とはほぼ同様の腹腔内所見であった。子宮および両側付属器周囲に内膜症性の癒着を認めたものの、卵巢チョコレート嚢胞の再発は認められなかったため、後腹膜腫瘍を疑い、症例1と同様の操作にて手術を終了した。

摘出標本病理学的検査にて嚢胞壁は扁平上皮で内容物として角化物を含んでいた。皮膚付属器、粘液産生性円柱上皮は認められず、類上皮のう胞と診断した(図6)。病理学的検査では内膜症組織は認められなかった。

術後経過は問題なく、現在再発を認めないまま術後1年10か月経過している。

a

b

c

図5 単純骨盤MRI)

a. T1強調画像 axial

b. T2強調画像 axial

c. T2強調画像 sagittal

直腸右側に径7.5cmの境界明瞭な多房性腫瘍を認める。内容液はT1強調画像にて低信号、T2強調画像にて高信号である。

図6 病理学的所見) HE染色 (×4)
腫瘍壁は重層扁平上皮で覆われ、皮膚付属器、粘液産生性円柱上皮は認められなかった。

考 察

直腸後腔は前方を直腸、後方を仙骨・尾骨、頭側を腹膜皺襞部、尾側を肛門尾骨靭帯と尾骨筋で境界されたスペースである¹⁾。Hawkinsらは直腸

後腔の先天性腫瘍の中で、胎生期の developmental errorによって生じる嚢胞性腫瘍をDevelopmental cystと定義し、組織学的に皮様のう腫、類上皮のう胞、粘液産生のう腫の3つに分類した²⁾。粘液産生のう腫は様々な文献の中で、直腸後腔過誤腫 (retrorectal cystic hamartoma) や尾腸嚢胞 (tailgut cyst) などの呼称をされるが同一の疾患である³⁾。

皮様のう腫と類上皮のう胞は外胚葉性成分の迷入と考えられており、皮様のう腫は皮膚付属器を伴い、類上皮のう胞は伴わないことから鑑別される。粘液産生のう腫は胎生期の尾腸の遺残によって生じ、円柱上皮で構成される^{2,4)}。

疾患報告としては稀で、医中誌Webを用いて、1983年から2015年7月までの期間で、「直腸後腔」、「tailgut cyst」、「epidermoid cyst」をキーワードにして検索したところ、国内での報告例は主に消化器外科症例にて64例であった。

Developmental cystは中年女性に多いとされる

が、先天性腫瘍のため新生児を含む全ての年代において発生する¹⁾。患者のほぼ半数が無症状とされ、残りは腫瘍の増大傾向に伴う違和感や疼痛、便秘・排尿困難などの圧迫症状が一般的である⁵⁾。産婦人科にて卵巣腫瘍と診断、手術を施行され、骨盤内腫瘍を認めないことから、外科へ転科となった症例も散見される^{6,7)}。検索しえた限りでは産婦人科での治療報告は、これまでほとんどない。

MRI検査では、粘液、高蛋白物質、血腫など腫瘍の内容物によってT1、T2強調画像において低信号から高信号まで様々な症例の報告がある。多くはT1強調画像において低信号、T2強調画像において高信号を呈する。しかし血腫などの影響によってT1強調画像にて高信号、T2強調画像にて低信号となる症例もあり、内膜症性嚢胞との鑑別が必要である⁸⁾。MRI矢状断において腫瘍位置や周囲臓器との関係が診断に有用であるという報告があり⁹⁾、本症例でも直腸が後方より腫瘍に圧排されているようにも取れ、また腹膜との位置関係から、術前でも後腹膜腫瘍の判断がついた可能性がある。診断は病理組織学的検査によって行われる。正確な術前診断は困難と言われ、疾患概念が広く浸透しておらず、痔瘻や肛門周囲膿瘍等として診断・治療を受けていることが少なくないとも指摘されている⁷⁾。

治療に関しては、感染、再発、瘻孔形成、悪性転化の報告があり、外科的に完全切除を行う必要がある¹⁴⁾。悪性転化症例については本邦では3例^{5,10,11)} (4.6%) が報告され、海外文献においても約10%¹²⁻¹⁴⁾ の悪性転化の可能性が指摘されている。また良性であっても局所再発があることが知られ、不完全切除例では術後4か月後の早期の再発の報告もある¹⁴⁾。

切除術式としては、これまで様々な方法が検討されているが、経腹的アプローチ、経仙骨的アプローチ、経腹/経仙骨的併用アプローチの3つに大きく分けることが出来る。経仙骨的アプローチはジャックナイフ位で行い、傍仙尾切開や水平切開で皮膚切開し、肛門尾骨靱帯と肛門拳筋を分けて腫瘍を露出する方法である¹⁵⁾。

アプローチ法の選択には一定のコンセンサスはないが、腫瘍サイズや腫瘍位置を参考に選択されることが多い^{16,17)}。腫瘍径が大きく、頭側への発育がある場合は経腹的アプローチ、腫瘍径が小さく、尾側方向への発育がある場合、また周囲への浸潤がない場合は経仙骨的アプローチが選択される傾向にある。具体的には腫瘍径が10cm以下、

あるいは8cm以下のものや腫瘍位置がS3またはS4以下のものは経仙骨的アプローチが勧められるとの報告がある^{13,16)}。

本邦62例の報告では、経仙骨的アプローチが41例、経腹的アプローチが20例、併用アプローチ・その他が3例であり、経仙骨的アプローチの内訳が多い結果であった。

経腹的アプローチは、骨盤内構造の同定がしやすく、尿管や腸骨血管の損傷も少ないとされる¹³⁾が、侵襲が大きく、上記のように骨盤低置の腫瘍の場合、腫瘍の露出が困難となる場合があるため、経仙骨手術がより多く選択される結果となったと思われる¹⁸⁾。

しかし経仙骨的アプローチにおいては開腹手術に比して低侵襲とはいえ、視野が狭く、切開創は10cm程度必要となる。特に臀部が大きく、筋肉の発達した症例においては、視野確保困難となりやすいため、V字切開へと切開創の延長、経括約筋的切除や開腹手術に切り替える必要がある場合がある¹⁵⁾。また尾骨や仙骨の一部を切除するため、術後疼痛が著明で継続する危険性があり、さらに切開創が肛門周囲に当たるため、創感染のリスクが高まると考えられる¹⁹⁾。

一方、カメラの拡大視野や鉗子の骨盤深部到達能が得られる腹腔鏡手術は、低侵襲性、合併症のリスク減少、腫瘍の完全摘出の点において優位であると考えられる。これまで本邦での腹腔鏡下手術でのDevelopmental cyst切除例の報告は4例であった。開腹手術での再発報告はあるが、腹腔鏡下手術での再発報告はない。全て消化器外科領域での症例報告である。外科領域では直腸癌に対する腹腔鏡下低位前方切除の経験が有用であったとの指摘があるが²⁰⁾、Developmental cyst手術部位は骨盤深部であり、深部内膜症や婦人科悪性腫瘍の知識・スキルが生かせる部位であると思われる。

本症例では2症例とも腹腔鏡手術での視野や鉗子操作性に困難はなかった。術前検査では悪性の可能性は否定的であり、腫瘍周囲の線維化のため分割切除としたものの、スムーズな操作が可能であり、合併症なく完全切除し得たと考えられる。術式の選択は腫瘍の大きさ、局在なども含め慎重に選択すべきであるが、症例を厳選すれば婦人科腹腔鏡下手術は選択肢の一つになり得ると思われる。

結 語

Developmental cystは稀な疾患であり、術前に

画像から内膜症性嚢胞と鑑別することが困難なことがある。また骨盤深部手術となるため深部内膜症や婦人科悪性腫瘍手術に対する内視鏡的スキルが要求されるが、腹腔鏡下手術は有用なアプローチ法であると思われる。

本論文の要旨は第16回東海産婦人科内視鏡手術研究会（2015年10月、名古屋）において発表した。

本論文に関わる筆者の利益相反：なし

文 献

- 1) Slim Jarboui, Hichem Jarraya, Mohamed Ben Mihoub, et al: Retrorectal cystic hamartoma associated with malignant disease. *Can J Surg* 2008; 51(6): E115-116
- 2) Hawkins WJ, Jackman RJ: Developmental cysts as a source of perianal abscesses, sinuses and fistulas. *Am J Surg* 1953; 86: 678-683
- 3) Hjermsstad BM, Helwig EB: Tailgut cyst: Report of 53 Cases, *AmJClinPathol* 1988; 89: 139-147
- 4) Anli R. Prasad, Mahul B. Amin, Todd L. Randolph, et al: Retrorectal Cystic Hamartoma, Report of 5 Cases With Malignancy Arising in 2. *Arch Pathol Lab Med* 2000; vol124: 725-729
- 5) 初貝和明, 金田巖, 庄司勝他: 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. *日本臨床外科学会雑誌*2009; 70 (3): 906-911
- 6) 野元優貴, 盛真一郎, 柳田茂寛他: 腹腔鏡下に摘出した仙骨epidermoid cystの1例. *手術*2014; 68 (10): 1425-1428
- 7) 金井俊平, 中村誠昌, 杉山朋大他: 妊娠中に発見されたtailgut cystの1例. *日本臨床外科学会雑誌*2012; 73 (3): 689-692,
- 8) Dal Mo Yang, Chul Hi Park, Wook Jin, et al: Tailgut cyst; MRI Evaluation. *American Journal of Roentgenology* 2005; 184: 1519-1523
- 9) Christopher Killingsworth, Thomas R, Gadacz : Tailgut Cyst (Retrorectal Cystic Hamartoma): Report of a Case and Review of the literature. *The Southeastern Surgical Congress* 2005; Feb. 11-15
- 10) 鄭充善, 池田公正, 北田昌之他: 悪性所見を伴ったTailgut cystの1例. *日消化外会誌*2007; 40 (1): 152-156
- 11) 佐藤正幸, 椎葉健一, 三浦康他: 成人前仙骨部epidermoid cystに発生した扁平上皮癌の1例. *日消外会誌*2015; 48 (2): 145-151
- 12) Hjermsstad BM, Helwig EB: Tailgut cyst: Report of 53 Cases, *AmJClinPathol* 1988; 89: 139-147
- 13) Sami Akbulut: Unusual cause of defecation disturbance: a presacral tailgut cyst. *European*

Review for Medical and Pharmacological Sciences 2013; 17: 1688-1699

- 14) 東勇氣, 山本精一, 加治正英他: 術後早期に再発したtailgut cystの1例. *臨外*2014; 69 (7): 883-887
- 15) 松本好市, 鈴木宏志: 経仙骨的直腸切除術. *消化器外科*1995; 18: 1011-1016
- 16) 茂田浩平, 石井良幸, 長谷川博俊他: 成人の前仙骨部に発生した類皮嚢腫 (epidermoid cyst) の2例. *日本大腸肛門病会誌*2012; 65: 51-57
- 17) 三宅伸完, 小倉猛: 成人の仙骨前面から後部に発生したepidermoid cystの一例. *形成外科*2010; 53 (3): 317-323
- 18) 塚本好彦, 佐溝政広, 高橋徹也他: 成人仙骨前類表皮嚢胞の1例. *日消外会誌*2008; 41 (6): 705-710
- 19) 中川国利, 工藤貴志, 岡田恭穂他: 腹腔鏡下に切除した仙骨前類表皮嚢腫の1例. *外科治療*2004; 90: 108-110
- 20) 大倉康生, 伊藤貴洋, 須崎眞: 腹腔鏡下に摘出した仙骨前面dermoid cystの1例. *外科*2014; 76 (13): 1656-1659