# 成人の前仙骨部成熟奇形腫の1例

広島大学医学部第1外科(主任教授:松浦雄一郎)

村上 義昭 藤本三喜夫 瀬分 均 竹末 芳生 児玉 餰 構山 降

## A CASE REPORT OF PRESACRAL MATURE CYSTIC TERATOMA IN ADULT

## Hitoshi SEWAKE, Yoshiaki MURAKAMI, Mikio FUJIMOTO, Yoshio TAKESUE, Takashi KODAMA and Takashi YOKOYAMA

First Department of Surgery, Hiroshima University School of Medicine (Chairman: Prof. Yuichiro Matsuura)

索引用語:前仙骨部奇形腫

### はじめに

前仙骨部腫瘍性病変はまれであるが、その発生学的 特徴によりきわめて多くの種類が報告されている1)。 それゆえ同部に病変を認めた場合、注意点も多く、と りわけ術前の質的、量的診断を的確に下すことが治療 上非常に大切である、われわれは各種画像診断を用い, 的確な術前診断のもと、経仙骨的に摘出できた成人の 前仙骨部巨大嚢胞性成熟奇形腫のまれな1例を経験し たので本症例の概要を報告すると共に、前仙骨部腫瘍 性病変の診断、術式に関し若干の文献的考察を加え報 告する.

#### I. 症 例

症例:29歳,女性, 主訴:左臀部腫瘤.

家族歴:特記すべきことなし、

既往歴:特記すべきことなし、

現病歴:22歳、第1子出産時左臀部に腫瘤を指摘さ れた、25歳、第3子妊娠中、同部に鈍痛が出現したが 出産ととに軽快したため放置、その後長時間の座位や 重いものを持つ際に痛みを感じるようになり、また腫 瘤が増大してきたため昭和62年7月当科受診,精査加 療目的にて入院した。

入院時所見:体格・中等度、栄養・良、視診では臀 部左側中央よりに軽度の膨隆を、直腸指診では直腸左 側後部(前仙骨部)に表面平滑、弾性軟な可動性のな い腫瘤を触れた.

<1988年6月8日受理>別刷請求先: 瀬分 〒734 広島市南区霞1-2-3 広島大学医学部第 1外科

臨床検査成績:血中 α-fetoprotein(以下 AFP)<10 ng/ml. carcinoembrionic antigen(以下 CEA)0.4ng/ ml, carbohydrate antigen 19-9 (以下 CA19-9) 43.1 u/ml, squamous cell carcinoma related antigen (以 下 SCC) 23.1ng/ml であり CA19-9, SCC の軽度上昇 を認めたほか特に異常はなかった。

前仙骨部腫瘍と診断、臨床的に鑑別診断を進めるべ く以下の検査を行った.

注腸透視:後方からの下部直腸の圧排所見を認めた (図1A).

腹部超音波検査:前仙骨部に嚢胞性腫瘤を認めた (図1B).

Magnetic resonance imaging (以下 MRI):特に,

図1 A. 注腸透視:後方からの直腸圧排(↑)を認め る. B. 腹部超音波検査:囊胞性腫瘤(T)を認める. UB:膀胱, U:子宮, R:直腸, T:腫瘤



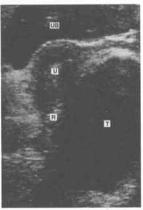
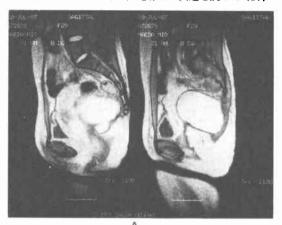
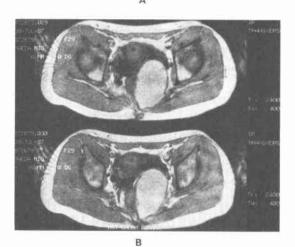


図 2 MRI (A: 矢状断, B: 冠状断). 前仙骨部に, 上方へは第 2 仙椎に達する境界明瞭な嚢胞性腫瘤を 認める (A) とともに, 尾骨との関連を疑った (B).





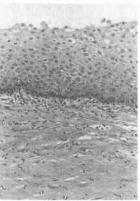
矢状断にて直腸を前方に圧排,上方へは第2仙椎まで 達する周囲との境界明瞭な嚢胞性腫瘤であることがわ かった。しかし神経系との関連,石灰化は認めず,一 方,尾骨との関連を疑った(図2, A, B).

腹部 X-P,drip infusion pyelography (以下 DIP),myelography では著変を認めなかった。

以上検査所見より,臨床的には第2仙椎に達する巨大な前仙骨部の嚢胞性,奇形腫群腫瘍(良性)を最も疑い,また患者の年齢等考慮し経仙骨的アプローチ法を第1選択とした。

手術:大腸の手術に準じた前処置後,8月17日全身 麻酔下,ジャックナイフ体位にて手術施行,皮切は臀 部後正中に縦切開とし仙尾関節,尾骨直腸靱帯を切離, 左側坐骨直腸窩より前仙骨部を占め直腸を圧排する嚢 図3 病理組織像、多列円柱上皮、扁平上皮および円柱上皮で囲まれた腺腔の形成を認める。





胞性腫瘤を確認した。穿刺吸引により約400mlの灰白色粘調内容液を排除後,囊胞壁に沿い周囲組織との間を剝離,尾骨を含め摘出した。ドレーン挿入し切開層は層々に閉鎖した。肉眼的には16×5×5cm大,多房性の嚢胞性腫瘍であった。

病理組織学的には多列円柱上皮, 扁平上皮で覆われた嚢胞性腫瘍で, 密な線維性結合組織から成る壁には円柱上皮で囲まれた腺腔の形成, 石灰沈着, 平滑筋束, 小骨形成を認め嚢胞性成熟奇形腫と診断した(図3).

術後は特に問題なく第10病日,軽快退院した。

### II. 考察

前仙骨部腫瘍性病変はまれであるが,その組織像は多彩で,Lovelady and Dockerty(1949) $^{23}$ に準じ表1(文献 1 より引用)のごとく種々のものが報告されている.従来の報告によれば先天性のものが最多で,なかでも近年奇形腫群腫瘍 $^{33}$ として包括される傾向にある発育嚢腫(developmental cysts)が多くを占める傾向にある $^{13}$ .

奇形腫群腫瘍が前仙骨部腫瘍性病変の多くを占めることは、いわゆる三胚葉性組織へ分化しうる多潜能細胞をもつ原始線条に同部が由来4)することより説明可能である。

本邦における成人仙尾部奇形腫の報告はまれで、今回検索しえた範囲では自験例が29例目と考えられる5<sup>5-71</sup>. 悪性例は4例(14%)であった。

外国での成人仙尾部奇形腫悪性例の頻度は, 4% (Miles)<sup>8)</sup>, 13.5% (Killen)<sup>9)</sup>などあり, いずれも予後不良であり, またその組織型も多彩である<sup>6)</sup>.

小児例に比べ, 成人例の報告が少ない理由として,

#### 前仙骨部腫瘍 表 1

Congenited

Developmental cysts

epidermoid, dermoid, mucus secreting and teratoma

Chardama

Teratocartinoma Adrenal rest tumos

Anterior sacral meningocele

Dunlication of rectum

Arteriovenous malformation

Pervic kidney

Inframmatory

Foreign body granuloma

Perineal abscess

Internal fictule

Perviorectal abscess

Chronic infectious granuloma Chronic osteomyelitis

Neurogenic

Neurofibroma and sarcoma

Neurolemmoma Enendymoma

Ganglioneuroma

Neuroblastoma

Occour

Osteoma

Osteogenic sarcoma

Simple hone cyst

Ewing's sarcoma

Chondromyxosarcoma

Aneurysmal bone cyst Giant cell tumour

Miscellaneous

文献 1) より引用

小児の後方発育型、仙骨前方発育型ともに大部分が、 小児期に加療されるため、一方、成人例では毛巣疾患、 自潰して痔瘻として取り扱われれ本症と認識されない 症例もあり、また発生部位がさまざまに表現されるた め集計が困難10)であるためと考えられる。

成人の仙尾部奇形腫は、前仙骨部型の皮様嚢腫の組 織像を主体とした成熟型奇形腫のことが多く、このた め悪性化はまれ、二次的に癌腫が発生する場合はその 大部分が扁平上皮癌である、など小児とはことなった 特徴3)10)がある. 奇形腫と腫瘍マーカーでは. AFP がよ く知られている。 自験例では SCC, CA19-9の高値を認 めたが本腫瘍との関連は不明であった。

前仙骨部腫瘍性病変の鑑別診断は表1を参考にすれ ばよいと考えるが、新生児では4%、小児では95%が 悪性、成人では嚢胞型の10%、固形型の60%が悪性と の報告()もあり、患者の年齢とともに嚢胞か固形型腫 瘍かの鑑別がとくに重要である.

診断法としては、従来より強調されている直腸内指 診の重要性に加え、腹部単純 X-P, 注腸造影, myelography, DIP, 肛門鏡所見などが, さらに近年では超 音波診断法,X線 computed tomography (以下 CT) などにより多くの情報を得ることが可能となってい る。本症例の診断に当たって、われわれは MRI を用い たが、本法の有用性は特に冠状断、矢状断など任意の 断面を得ることができる点、組織の区分能力が X 線 CT などより高く解剖学的位置関係を明瞭に描出でき る点があげられ11), 腫瘍の高さ, 腫瘍と脊髄, 尾骨との 関連などを予想することができ、 術式の選択上極めて 有用であった しかし微細な構造の描出にはあまり向 いていなく弱点として微細な石灰化の描出が不可能な 点があげられる<sup>II)</sup>

腫瘍生検による術前組織診断は腫瘍播種、膿瘍、糞 瘻、髄膜炎などの合併症の可能性12)のため、また術式の 選択の上でも必須のものとは考えがたく, 切除可能症 例では安易な生検は慎むべきである.

Finneがは前仙骨部腫瘍性病変を取り扱う際に臨床 上最も簡便、有用なものとして神経、仙骨との関連を 重要視し、本病変を、1、神経、骨を巻き込んだ病変、 2. 骨を巻き込んだ病変、3. 腫瘍性成分のみの病変の 3群に分類した。本病変の診断、治療方針の決定の際 の一助となるものと考える

治療法としては外科的切除が唯一で,一般的には経 仙骨的アプローチ法が選択される傾向にある.しかし, 完全腫瘍摘出を目標に、予想される病変(組織型),位 置、大きさ、術後の機能保持すなわち quality of life, また特に若い女性では cosmetic な面をも留意し、慎 重に術式を選択する必要がある。

まず、神経を巻き込んだ病変では可及的神経の温存 に努めるべきで膀胱、直腸機能の保持に関して、とり わけ第3仙骨神経以上の温存に留意が必要である。神 経解剖学的には後方からのアプローチに加え laminectomy が必要となることが多い4)。出血または 悪性が予想される腫瘤摘出に際しては、出血および転 移予防のため仙骨動静脈の結紮を先行する13)ことも考 慮する必要があろう。本症例では仙尾関節切離時に仙 骨動静脈は先行処理でき特に問題とはならなかった.

経仙骨的アプローチの適応として、Finneがは、いわ ゆる腫瘍性成分のみの病変で直腸内指診により腫瘍の 半分以上を触れれば、また Stewart らいは径10cm 以下 であれば可能であるとしている。一方 Madanes<sup>14)</sup>は 5×6cm 大の benign cystic teratoma に対して経膣的 摘出術式(Schuchardt incision)を報告しており適応 を選べば有用であろう.

Gross<sup>15)</sup>は奇形腫摘除に際し尾骨の合併切除を行わ なかった症例に37%もの再発を報告,奇形腫摘除に際 し、留意する必要がある。これは三胚葉形成細胞を取 り除くことに意義があると考えられる。

以上、前仙骨部腫瘍性病変の治療に当たっては、術 前の組織診断は必ずしも必要でなく,また症例ごとに 適切な術式をを選択すべきであることを重ねて強調したい。

## III. 結 語

- 1. まれな,成人の前仙骨部巨大嚢胞性成熟奇形腫 1 例を報告した
- 2. 本症例の診断, 術式の選択に当たっては画像診断, とりわけ MRI が有用であり, 手術的には第2 仙椎に達する巨大奇形腫を経仙骨的に安全に摘出できた.

稿を終えるに当たり病理組織学的御指導をいただいた広 島大学医学部第1病理学教室, 梶原博毅助教授に深謝いた します

## 文 献

- 1) Stewart RJ, Humphareys WG, Parks TG et al: The presentation and management of presacral tumors. Br J Surg 73: 153—155. 1986
- Lovelady SB, Dockety MB, Minn R: Extragenital pelvic tumors in women. Am J Obstet Gynecol 58: 215-236, 1949
- 3) 遠城寺宗知, 恩村雄太, 若狭治毅ほか: 奇形腫群腫 瘍の組織分類, 日小児外会誌 13:919-937, 1977
- 4) Finne CO III: Presacral tumor and cysts. Edited by Cameron JL. Current Surgical Therapy-2. Laaku-Shoin, Tokyo, 1986, p482 -487
- 5) 柴田信博, 野口貞夫, 藤本直樹ほか:前仙骨部腫 瘍. 外科治療 57:235-238, 1987
- 6) 名越淳之介, 竹内 尚, 田中則文ほか:成人の仙骨

- 前悪性奇形腫の1例. 臨外 42:1711-1714,1987
- 7) 井上晴洋, 杉原国抹, 山下哲夫ほか:自然破裂により汎発性腹膜炎を来たした仙骨部類皮嚢腫の1 例. 日消外会誌 20:1996—1997. 1987
- 8) Miles RM: Sacrococcygeal teratoma in adults. Ann Surg 179: 676-6987, 1974
- Killen DA, Jackson LM: Sacrococcygeal teratoma in the adult. Arch Surg 88: 425-433, 1964
- 10) 松山四郎, 小暮公孝, 中村卓次ほか:成人の尾仙部 畸形腫. 癌の臨 24:732-736, 1978
- 11) 八代直文: 術腹膜・骨盤内腫瘍の MRI 診断. 末知 恵一,森山紀之編. 図説臨床癌シリーズ癌の CT 診断. メジカルビュー社,東京, 1987, p114—118
- 12) Jao SW, Beart RW Jr, Spencer RJ et al: Retrorectal tumors. Dis Colon Rectum 28: 644-652, 1985
- 13) Smith B, Passaro E, Clatworthy HW Jr et al: The vascular anatomy of sacrococcygeal tetatomas: Its significance in surgical management. Surgery 49: 534—539, 1961
- 14) Madanes AE, Kennison RD, Mitchell GW Jr et al: Removal of a presacral tumor via a schuchardt incision. Obstet Gynecol 57: 94-96, 1980
- 15) Gross RE, Clatworthy HW Jr, Meeker IA Jr et al: Sacrococcygeal teratomas in infants and children. Surg Gynecol Obstet 92: 341—354, 1951