

CA19-9 高値を示した成人 Tailgut cyst の 1 例

春日井市民病院外科

桐山 真典 金井 道夫 中村 從之
大場 泰洋 濱口 桂 小松俊一郎
山田 英貴 小出 史彦 渡辺 芳雄

症例は 58 歳の女性。主訴，CA19-9 高値。検診腹部超音波検査で総胆管の拡張を指摘され，当院受診した。血液検査で CA19-9 160U/ml と高値であるものの，MRCP・CT では特に異常なく経過観察とした。その後さらに CA19-9 が上昇したため再施行した CT で前仙骨部の腫瘤影を認めた。注腸検査で直腸後壁の壁外性圧排像を認めた。直腸超音波内視鏡検査では，同部位に比較的均一な内部エコーを持つ多房性腫瘤を認めた。直腸後壁粘膜下腫瘍を疑い，経仙骨的直腸切除術を行い腫瘤を切除した。組織学的に Tailgut cyst と診断した。免疫染色では囊胞壁は CA19-9 陽性であった。

術後経過は良好で，CA19-9 値は 2 週間後には正常化した。原因不明の CA19-9 の上昇を認める症例では本疾患も疑う必要があると思われた。

はじめに

仙尾骨・直腸後壁・腹膜翻転部および肛門挙筋に囲まれた前仙骨部の腫瘤は小児では散見されるが成人での報告例は少ない。今回，術前 CA19-9 高値を示した前仙骨部 Tailgut cyst を切除しえたので報告する。

症例：58 歳，女性
主訴：CA19-9 高値
自覚症状：なし。

現病歴：2001 年 6 月人間ドックで施行された腹部超音波検査で総胆管の拡張を指摘されたため，当院紹介受診した。受診時血液検査では CA19-9 が高値であったが，MRCP・CT 検査では胆道系に特に異常なく経過観察となった。2001 年 12 月 13 日の CA19-9 値が 217.4U/ml と上昇したため，再度精査を行った。

初診時現症：腹部は平坦かつ軟で，腫瘤は触知しなかった。球結膜に黄染を認めなかった。

初診時血液検査（2001 年 8 月 7 日）：CA19-9

160U/ml，CEA 1.6ng/ml。

MRCP：総胆管の軽度拡張を認めた。胆管の狭窄・腫瘤像は認めなかった。

腹部超音波検査：総胆管が 8.4mm と軽度拡張していた。

上腹部 CT：総胆管の拡張を認めるものの，腫瘍性病変などは認めなかった。

2 回目 CT：肝胆脾に特に異常は認めなかった。骨盤部 CT で前仙骨部の腫瘤影を認めた (Fig. 1)。

骨盤 MRI 矢状断：直腸背側の前仙骨部に多房性囊胞性病変を認めた (Fig. 2)。

注腸検査：直腸後壁に壁外性圧排像を認めた (Fig. 3a)。

大腸内視鏡検査：外方からの突出を認めるが，同部の粘膜に異常は認めなかった。

大腸超音波内視鏡：比較的均一な内部エコーを持つ多房性腫瘤を認めた (Fig. 3b)。

以上より CA19-9 高値をしめす直腸後壁粘膜下腫瘍を疑い，2002 年 4 月 4 日経仙骨的腫瘍切除術を施行した。

手術所見：体位を Jack-knife とし，尾骨を一部切除し，その腹側と直腸の背側の間に多房性腫瘤を認めた。腫瘤を直腸壁から剥離するのは困難で

Fig. 1 Computed tomography of pelvic showed the tumor shadow(T)at presacral(retrorectal)space . (R ; rectum, V ; vagina)



Fig. 2 Magnetic resonance imaging of pelvic (sagittal view) showed polycystic tumor at presacral space(arrow)

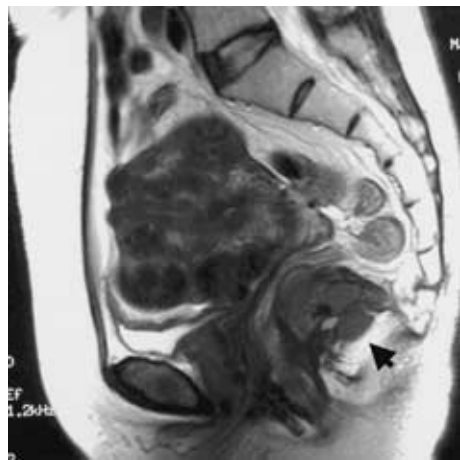
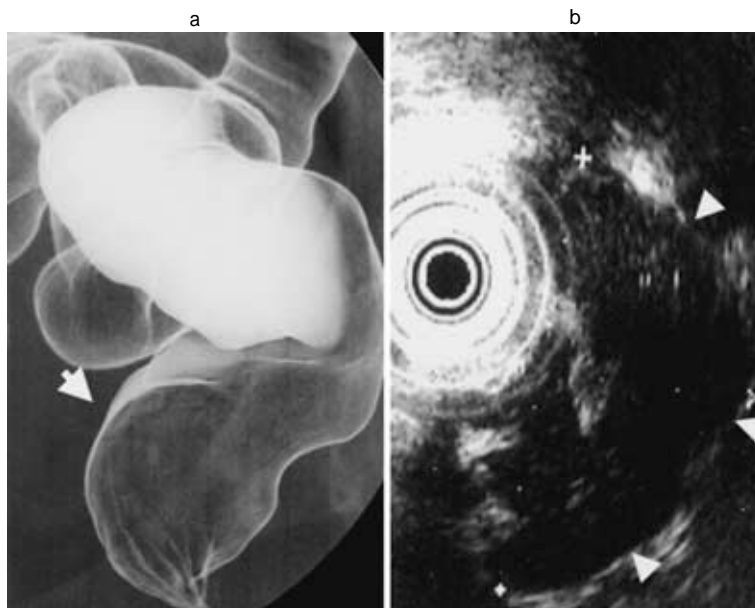


Fig. 3 a) Barium enema demonstrated the posterior wall of rectum pressed outside. b) Endoscopic ultrasonography of rectum demonstrated the polycystic tumor (arrow head)



あり，腫瘤と接する直腸を環状に合併切除，端端吻合とした．

切除標本：内面が平滑な多房性嚢胞を認めた．嚢胞内容は茶白色の泥状物であった (Fig. 4) . 嚢胞内腔に歯・骨・毛髪は認めなかった．

組織所見：直腸固有筋層内から，外周性に重層扁平上皮で連続する多房性嚢胞を認めた．嚢胞壁には重層扁平上皮と移行上皮が混在していた．嚢胞と直腸との境界は不明瞭であった．悪性所見はなく，組織学的に尾腸嚢胞 Tailgut cyst と診断し

Fig. 4 The resected specimen showed multiple cysts, and the inner surface was smooth. There was no hair, dens, and bone in the cyst.

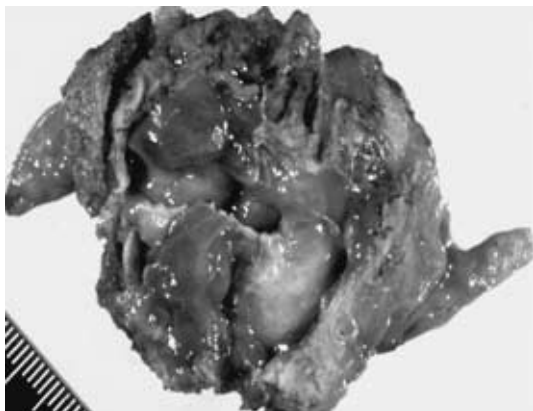


Fig. 5 Histological finding showed multiple cysts with variation of lining cells, including squamous, columnar, and transitional epithelia. Border of cyst and rectum was unclear.



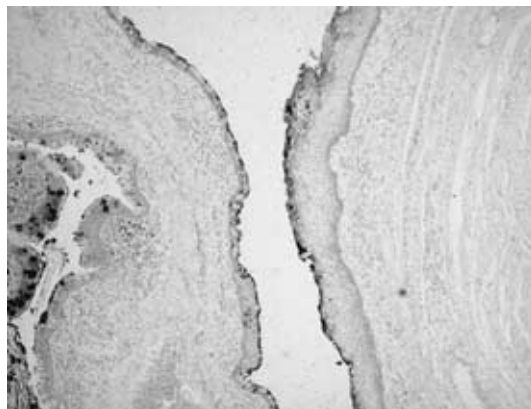
た (Fig. 5). 嚢胞内壁は CA19-9 染色陽性であった (Fig. 6).

術後経過は良好で 2002 年 4 月 21 日に退院した . CA19-9 は 2002 年 4 月 19 日に 31.1U/ml と正常化し , 術後 1 年経過時の血液検査では 15.4U/ml と再上昇を認めていない .

考 察

前仙骨部 (presacral space) は後直腸部 (retrorectal space) とも呼ばれ , 前面を直腸 , 後面を仙骨・尾骨 , 下方は肛門尾骨靭帯および肛門挙筋 ,

Fig. 6 Inner surface was positive on immuno staining of CA19-9.



上方は腹膜翻転部で境界される . この部は発生学的に尾の発生・消失に関わる場所で , 内・中・外胚葉の接点のため各種の先天性腫瘍が発生することがあると報告されている . 小児では奇形腫の発生が多いが成人での前仙骨部腫瘍の発生は少ないといわれている . 前仙骨部に発生する腫瘍には皮様嚢胞 , 類表皮嚢胞 , 尾腸嚢胞 , 奇形腫などが報告されている .

MEDLINE から検索した欧米の報告例では , Hawkins¹⁾らは前仙骨部嚢胞性腫瘍を developmental cyst と定義し , 皮様嚢腫 (dermoid cyst) , 類表皮嚢腫 (epidermoid cyst) , mucus secreting cyst の 3 つに分類した . このうち mucus secreting cyst は Hjerstad²⁾らにより尾腸嚢胞 Tailgut cyst の名称で呼ぶことが推奨され , 文献的には「 tailgut vestige 」 , 「 retrorectalcystic hamartoma 」などと報告されているものも全て同一疾患と考えられる . Tailgut cyst は 2~4 層の円柱上皮が主であるが , 炎症などによる上皮化生の結果 , 移行上皮や重層扁平上皮などが混在することもある³⁾ . 自験例でも移行上皮と重層扁平上皮が混在しており Tailgut cyst と組織学的に診断した .

医学中央雑誌から検索しえた Tailgut cyst 本邦報告例は自験例を含めて 19 例³⁾⁻²⁰⁾と少ない (Table 1). しかし , 痔瘻⁶⁾や肛門周囲膿瘍¹²⁾と診断・治療をうけていたり , 奇形腫など他の疾患と診断されている症例¹³⁾があると考えられ , Tailgut

Table 1 Tailgut cyst in Japan ; 19 cases

Case	age/sex	diagnosis	resection		malignancy	CA19-9	
			approach	rectum		Pre ope.	Post ope.
1 Iizawa	1985, 29F	MSC	transsacral	-	-	***	
2 Tajima	1986, 49F	MSC	transsacral	-	-	***	
3 Kishima	1991, 42F	TGC	transsacral	-	-	High	w. n. l
4 Yoshida	1992, 54F	TGC	transsacral	-	-	***	
5 Maeda	1994, 2M	TGC	transsacral	-	-	***	
6 Miyajima	1995, 20F	TGC	transsacral	-	-	***	
7 Fujitaka	1995, 72M	TGC	lapalotomy	+	**	***	
8 Ishii	1995, 6mM	TGC	transsacral	-	-	***	
9 Kaneko	1995, 5mF	TGC	transsacral	+	-	***	
10 Takeuchi	1996, 45F	TGC	transsacral	-	-	w. n. l	
11 Maruyama	1998, 66F	TGC	transsacral	-	+	***	
12 Ito	1998, 65M	TGC	lapalotomy	-	-	High (fluid)	***
13 Emoto	1998, 37F	TGC	transsacral	-	-	High	***
14 Kitagawa	1998, 62F	MSC	transsacral	-	-	w. n. l	
15 Takasu	1999, 40F	TGC	transsacral	-	-	***	
16 Nakagawa	2000, 61F	TGC	lapalotomy	-	-	***	
17 Iwakawa	2001, 70F	TGC	lapa + transsacral	+	+	w. n. l	
18 Ouba	2002, 59F	TGC	transsacral	-	-	w. n. l	
19 Kiriyaama *	2003, 58F	TGC	transsacral	+	-	High	w. n. l

* our case ** rectum cancer complicated *** no discription

TGC : Tailgut cyst, MSC : Mucus secreting cyst

cyst の名称が浸透するにつれて報告が増加すると考えられる。

Tailgut cyst もふくめ、前仙骨部嚢胞性病変は①感染しやすい②一度感染すると腫瘍の完全切除が困難となり再発しやすくなる③本邦報告例で2例(約11%)、Hjermstadによれば約10%の悪性化の可能性がある、という点で治療の原則は完全切除である。

本邦報告例の手術術式は経仙骨切除14例、開腹による切除3例、両方によるもの1例であった。直腸の切除・切断は4例に行われ、他の15例は腫瘍のみの摘出が可能であった。本例では直腸との剥離を試みたが困難で経仙骨的直腸環状切除を行った。組織学的にみても直腸筋層との連続性があり腫瘍のみの摘出は困難と思われた。

記載のあった8例中3例で血中CA19-9が増加しており、いずれも肝胆膵領域に異常を認めなかった。また1例では嚢胞貯留液のCA19-9が高値であった。

CA19-9は正常組織上皮からも産生されるため、上皮性嚢胞であればその上皮からの産生により循

環しない嚢胞貯留液では高値になると考えられる。血中CA19-9が上昇するには局所炎症反応とそれに伴う血管透過性亢進、嚢胞内圧上昇が関与すると考えられている¹⁵⁾。本例では①免疫組織染色で嚢胞内の上皮にCA19-9の産生を認めたこと②切除後にCA19-9が正常化したことからTailgut cystが血中CA19-9上昇の原因であったと考えられる。

Tailgut cyst 本邦報告19例の主訴は、臀部・会陰部腫瘍6例、肛門部痛・排膿4例、血便2例、便秘2例、検診異常2例、下腹部痛1例、排尿障害1例、微熱1例であり、特徴的な症状はなく臨床症状のみでの診断は難しいと考えられる。そのため、臀部・骨盤部腫瘍、難治性痔瘻や原因不明のCA19-9高値例ではTailgut cystを疑って検査・治療を行うことが本疾患の診断に重要であると考えられる。

文 献

- 1) Hawkins WJ, Jackman RJ : Developmental cysts as a source of perianal abscesses, sinuses and fistulas. Am J Surg 86 : 678 683, 1953

- 2) Hjermstad BM, Helwig EB : Tailgut Cysts : Report of 53 Cases. Am J Clin Pathol 89 : 139 147, 1988
- 3) 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 . 日本大腸肛門病学会誌 54 : 551 556, 2001
- 4) 飯澤 肇, 亀山仁一, 星川 匡ほか : 後直腸腔に発生した Mucus-secreting cyst の1手術例 . 臨外 40 : 715 718, 1985
- 5) Tajima Y, Tomioka T, Mochinaga N et al : Mucus-secreting Presacral Cyst. Jpn J Surg 16 : 231 234, 1986
- 6) 木島三夫 : Tailgut cysts の1例 . 日本大腸肛門病学会誌 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) 前田尚利, 古平 毅, 安藤容子ほか : 尾部腸管嚢胞の1例 . 臨放線 39 : 1189 1192, 1994
- 9) 宮嶋公貴, 宣保昌樹, 真角 正ほか : 坐骨直腸窩を介し骨盤内から臀部皮下へ進展した尾腸嚢胞の1例 . 臨放線 40 : 1509 1512, 1995
- 10) Fujitaka T, Nakayama H, Fukuda S et al : A tailgut cyst found accompanying rectal cancer : Report of a case. Surg Today 25 : 65 67, 1995
- 11) 石井 修, 吉田靖彦, 坂下吉宏ほか : Tailgut cyst の一乳児例 . 日小児外会誌 31 : 633 637, 1995
- 12) 金子道夫, 大川治夫, 岸川真由美ほか : 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 . 日小児外会誌 31 : 59 64, 1995
- 13) 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
- 14) Maruyama A, Murabayashi K, Hayashi M et al : Adenocarcinoma arising in a tailgut cyst. Surg Today 28 : 249 251, 1998
- 15) 伊藤史人, 須崎 真, 水野修吾ほか : Tailgut cyst の1例 . 日消病会誌 96 : 154 159, 1998
- 16) 江本健太郎, 高橋忠照, 山村基成ほか : Tailgut cyst の1例 . 消外 21 : 115 120, 1998
- 17) 北川雄一, 山口晃弘, 磯谷正敏ほか : 粘液産生能を有する尾仙部嚢胞の1例 . 消外 21 : 121 124, 1998
- 18) 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 . 臨放線 44 : 303 306, 1999
- 19) 中川国利, 鈴木幸正, 豊島 隆ほか : Tailgut cyst の1例 . 消外 23 : 519 523, 2000
- 20) 大場 大, 磯部芳彰, 八木治雄ほか : Tailgut cyst の1例 . 日臨外会誌 63 : 2738 2742, 2002

A Case of Adult Tailgut Cyst with High Score of CA19-9

Shinsuke Kiriya, Michio Kanai, Yoriyuki Nakamura, Yasuhiro Ouba,
Katura Hamaguchi, Shunichirou Komatu, Hideki Yamada,
Fumihiko Koide and Yoshio Watanabe
Department of Surgery, Kasugai Municipal Hospital

A 58-year-old female was diagnosed as having dilatation of the common bile duct on abdominal ultrasound. MRCP and upper abdominal CT showed no abnormal findings, but blood chemistry findings revealed that the CA19-9 was 160 U/ml. Because the CA19-9 levels became higher and higher, we performed CT again. It showed a presacral tumor shadow. A barium enema demonstrated the posterior wall of rectum pressed outwards. Endoscopic ultrasonography of the rectum demonstrated a polycystic tumor, which we suspected as being a submucosal tumor of the posterior wall of the rectum. The tumor was resected by a transsacral operation and lower rectum circle resection. The pathological diagnosis was a tailgut cyst. After the operation, the levels of CA19-9 normalized.

Key words : Tailgut cyst, presacral cyst, CA19-9

[Jpn J Gastroenterol Surg 37 : 87 91, 2004]

Reprint requests : Shinsuke Kiriya Department of Surgery, Kasugai Municipal Hospital
1 1 1 Takagichou, Kasugai, 486 8510 JAPAN