

症例報告

## 悪性所見を伴った Tailgut cyst の 1 例

市立豊中病院外科, 同 病理診断科\*

鄭 充善 池田 公正 北田 昌之  
花田 正人\* 島野 高志

悪性所見を伴った Tailgut cyst は極めてまれであり, 自験例を含めてこれまで世界で 8 例の報告をみるのみである. 今回, 我々は悪性所見を伴った Tailgut cyst の 1 例を経験したので報告する. 症例は 33 歳の女性で, 不正性器出血を契機に骨盤内腫瘍を指摘され, 腫瘍摘出術を施行した. 腫瘍は, 前仙骨部 (presacral space) に存在し, 特に尾骨と強固に癒着していたが腫瘍のみ完全摘出可能であった. 病理診断にて Tailgut cyst と診断され, 嚢胞壁の一部に, mucinous carcinoma を認めた.

### はじめに

Tailgut cyst は, 胎生期に一過性に存在する tailgut の遺残に由来する嚢胞性腫瘍であり, 前仙骨部 (presacral space) または後直腸部 (retrorectal space) と呼ばれる部位に発生することが知られている. 今回, 我々は悪性所見を伴った Tailgut cyst の 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: 33 歳, 女性

主訴: 不正性器出血

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: 不正性器出血を主訴に 2003 年 11 月に近医婦人科を受診された. 経膈超音波検査で骨盤内腫瘍を指摘され, 当院婦人科を受診となった.

現症: 眼瞼結膜に軽度の貧血を認めたが, 腹部に腫瘍は触知しなかった. 内診では, 右付属器の腫大を認めた. 直腸指診では, 直腸右壁に壁外性腫瘍を触知した.

血液検査所見: Hb 10.3g/dl と軽度の貧血を認めた. また, 腫瘍マーカーでは CA19-9 40U/ml と軽度上昇を認めたが, CEA, CA 125 は正常範囲

内であった.

経膈超音波検査: 子宮の右側後方に 9.7×5.6×8.9cm の嚢胞性腫瘍を認めた. 腫瘍内部は不均一で, 高エコー域と低エコー域が混在していた. 子宮, 付属器との関係は十分に観察できなかった (Fig. 1).

骨盤 MRI: 腫瘍は周囲組織との境界は明瞭で, T1 強調画像で low, T2 強調画像で high intensity を示した. 内部は均一で, 嚢胞壁の一部に肥厚を認めた. 子宮, 付属器との連続性は認められなかった. 直腸は腫瘍によって左側に圧排されていた (Fig. 2).

以上の所見より, 骨盤内腫瘍の診断で 2004 年 1 月に開腹術を施行した.

手術所見: 腫瘍は直腸右側の骨盤内後腹膜で, 右骨盤神経叢, 仙・尾骨, 肛門挙筋, 直腸に囲まれた部位に存在していた. 特に, 尾骨と強固に癒着していたが, 直腸を切除することなく, これを完全摘出した. また, 内容物を術中迅速病理組織学的検査に提出するも, 悪性細胞は認められなかったため, 腫瘍摘出術のみで手術終了とした.

切除標本: 嚢胞内容は淡茶色の粘液で充満しており, 毛髪や骨は認められなかった. また, 肉眼的に壁の肥厚は認めず, 嚢胞内腔に充実性成分は認めなかった (Fig. 3).

病理組織学的検査所見: 嚢胞壁の細胞は粘液産

<2006 年 5 月 31 日受理>別刷請求先: 鄭 充善  
〒560-8565 豊中市柴原町 4-14-1 市立豊中病院  
外科

**Fig. 1** Ultrasonic examination showed a mass mixed with a high and low echoic lesion, with a diameter 9.7×5.6×8.9 cm, located behind the uterus on right side.



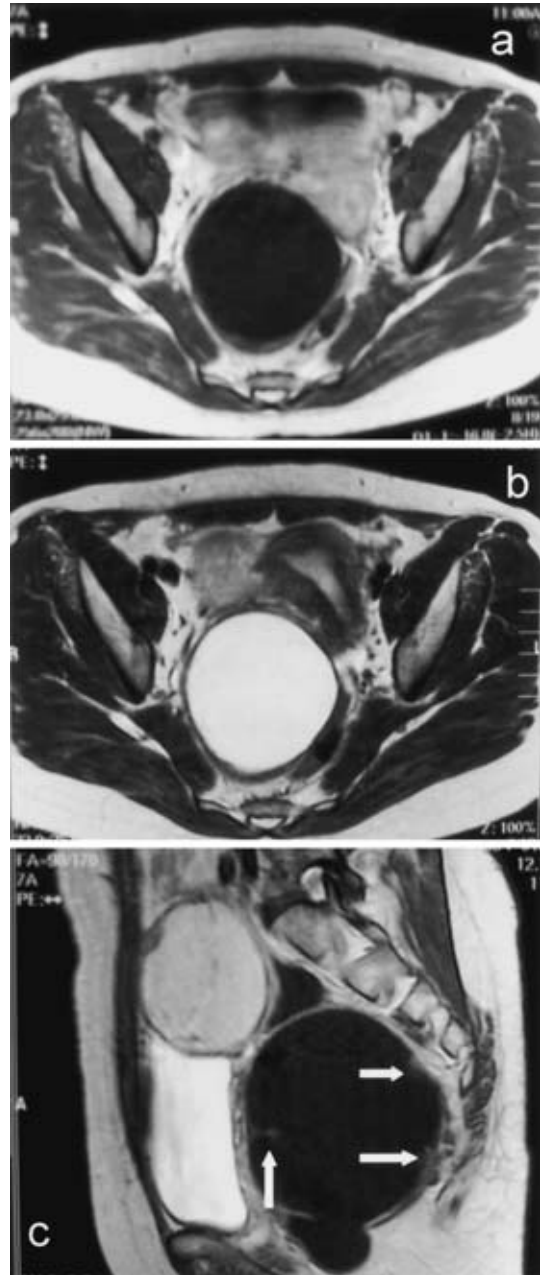
生を伴い、扁平上皮と円柱上皮で構成されていた。汗腺、皮脂腺などの皮膚附属器成分は認めなかった (Fig. 4)。以上より、組織学的に Tailgut cyst と診断した。また、嚢胞壁の一部に mucinous carcinoma を認めた (Fig. 5)。

術後経過：術後放射線化学療法は施行せず、術後2年間無再発生存中である。

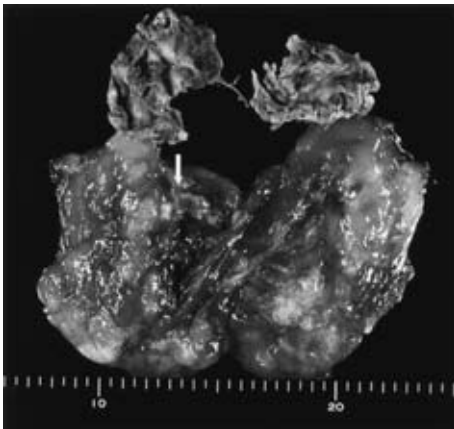
#### 考 察

Tailgut cyst は胎生期に一過性に存在する tailgut の遺残に由来する嚢胞性腫瘍であり、前方を直腸、後方を仙骨、上方を腹膜翻転部、下方を肛門挙筋によって囲まれる前仙骨部 (presacral space) または後直腸部 (retrorectal space) と呼ばれる部位に発生する。1953年, Hawkins ら<sup>1)</sup>は前仙骨部に発生する腫瘍のうち、発生学的異常による嚢胞性腫瘍を developmental cyst と定義し、組織学的に dermoid cyst, epidermoid cyst, mucus secreting cyst の三つに分類した。また, mucus secreting cyst は Hjermstad ら<sup>2)</sup>によって Tailgut cyst の名称が提唱され、その名が一般的となっている。Tailgut は胎生初期に一過性に存在し、明らかな漿膜、筋層はなく、内面を2~4層の円柱上皮で覆われた管状構造を呈する<sup>3)</sup>。これが遺残し、その中に落屑した上皮や粘液で充満した嚢胞が

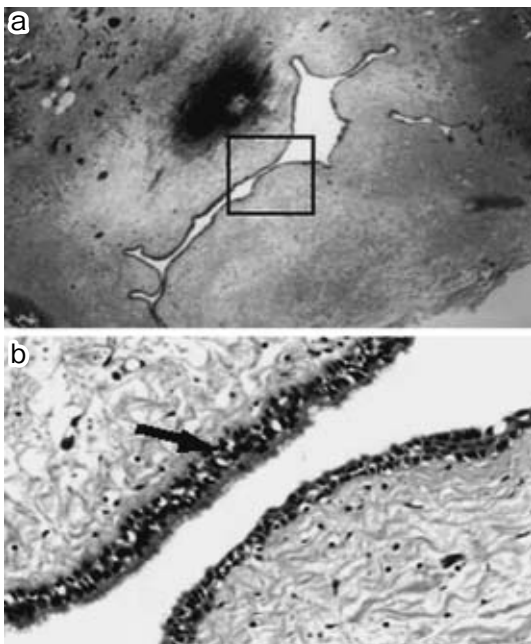
**Fig. 2** Pelvic MRI showed the tumor was visualized a lower intensity in a T1 weighted image (a, c) and a higher intensity in a T2 weighted image (b). Inner part of the tumor showed homogenous density while part of the septal wall showed irregular thickening. (arrow)



**Fig. 3** The resected specimen had a mucinous fluid collection. The inner surface was smooth. Mucinous carcinoma was diagnosed in this area. (arrow)



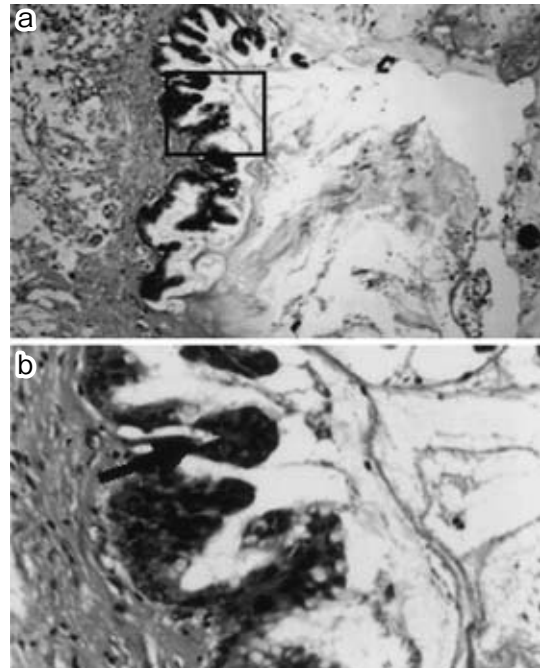
**Fig. 4** Histological finding showed that epithelial cells of the cyst wall consisted of various cell types, including squamous, and columnar epithelia with mucin. (arrow) (a ; HE  $\times 40$ , b ; HE  $\times 400$ )



Tailgut cyst と定義されている<sup>4)</sup>.

鑑別診断には、皮様嚢腫、類皮様嚢腫、奇形腫、

**Fig. 5** Histological finding showed mucinous carcinoma in situ. (arrow) (a ; HE  $\times 40$ , b ; HE  $\times 400$ )



重複腸管などが挙げられるが、術前の画像診断では鑑別が困難であり、最終的には術後の組織学的検査にて診断される。皮様嚢腫は扁平上皮に覆われ、皮膚附属器成分を有する。類皮様嚢腫は扁平上皮で覆われ、角化物を認めるが皮膚附属器は認めない。奇形腫は3胚葉系由来の成分より構成され、高頻度に石灰化を認める。重複腸管は腺窩、絨毛、筋層間神経叢を有し、はっきりとした2層の平滑筋層と漿膜から構成されている。Tailgut cystは、円柱上皮が主であるが、上皮化生により扁平上皮、移行上皮が混在することもある。また、発達した平滑筋線維、漿膜を持たず、完全に2層構造を呈することはない<sup>2)</sup>。

臨床的特徴であるが、男女比は約1:3で女性に多く、中年層に好発する。約半数が無症状であり、画像診断にて偶然発見されることもめずらしくない。症状としては、腫瘤の圧迫による症状（直腸充満感、頻尿など）、腰痛、局所痛、排便障害、排尿障害、血便、難治性膿瘍などが報告されている

Table 1 The reports of Tailgut cyst associated with malignant findings

	Author	Year	Age	Sex	Operation	Histology	Prognosis
1	Ballantyne <sup>16)</sup>	1931	38	F	unknown	adenocarcinoma	8M dead
2	Crowley <sup>17)</sup>	1960	38	F	TSR	well	12M recurrence
3	Marco <sup>19)</sup>	1982	62	F	TSR	well	20M alive
4	Hjermstad <sup>20)</sup>	1985	31	F	APR	poorly	8M dead
5	Levert <sup>18)</sup>	1996	63	F	TSR	papillary	5Y alive
6	Murayama <sup>12)</sup>	1998	66	F	TSR	moderately	3Y2M alive
7	Iwakawa <sup>11)</sup>	2000	70	F	TAR TSR, ASR	well	2Y11M recurrence after ASR 1Y alive after TSR
8	Present case		33	F	TAR	mucinous	2Y alive

TSR : trans-sacral resection, ASR : abdomino-sacral resection, TAR : trans-abdominal resection, APR : abdomino perineal resection

が、臨床所見だけでは診断は困難である。

治療は、感染の危険性、悪性化の報告により、原則として完全摘出が望まれる。腫瘍への到達法は腫瘍の位置、大きさ、形状によりさまざまであるが、我々が「Tailgut cyst」をキーワードに1991年から2005年までで医学中央雑誌およびその引用文献から検索しえた本邦報告例は23例で、経仙骨的アプローチが19例、開腹アプローチが3例、両方によるものが1例であった。また、腫瘍のみの摘出が可能であったものが19例、直腸合併切除が4例であった<sup>5)~14)</sup>。術式、特に腫瘍へのアプローチは性状、大きさによりいくつか論じられている。Hjermstadらは経肛門的アプローチでは視野が狭く取り残す危険性があるとしている。また、5cm以上の腫瘍径では経腹仙骨的アプローチが良いとしている。Abelら<sup>15)</sup>は傍仙骨切開で尾骨合併切除を行うと、良好な視野が得られ腫瘍の完全摘出が容易となるとしている。尾骨合併切除をするべきかどうかは議論の余地があると思われるが、悪性化の報告があることを考えると、術中に嚢胞を損傷しないこと、尾骨近傍でしっかりと surgical margin を確保することが重要であると思われる。自験例では開腹アプローチにて腫瘍の完全摘出が可能であった。

悪性所見を伴う Tailgut cyst は自験例を含めて世界で8例のみで<sup>11)12)16)~20)</sup>、本邦では岩川ら<sup>11)</sup>、Murayamaら<sup>12)</sup>がそれぞれ1例ずつ報告している (Table 1)。Murayamaらが報告した1例では、術前の骨盤MRIで嚢胞内に乳頭状隆起が認められ

たことより悪性を疑ったが、他の例では術前の画像診断で嚢胞内に充実性病変を認めなかったため、良悪の鑑別は非常に困難であった。また、腫瘍径と良悪との関係についても検討を行ったが、平均の腫瘍径は良性で6.6cm、悪性で7.7cmであり、良悪の鑑別は困難であると推測される。組織型は高分化から低分化の腺癌であり、周囲への浸潤は carcinoma in situ から直腸壁に達するものまでさまざまである。手術術式は、ほとんどが経仙骨的切除であるが、悪性と診断されたために直腸切断術やリンパ節郭清術が追加されている症例もある。しかし、進行例は予後不良で、3例が再発し、うち2例が1年以内に死亡している。Crowleyら<sup>17)</sup>は術後に放射線治療を追加しているが、効果がなかったと報告している。

骨盤内嚢胞性腫瘍の鑑別において、本疾患を念頭におくこと、また悪性例が高頻度(3/23, 13.0%)であるため手術の際には腫瘍を完全切除することが重要であると考えられる。

本論文の要旨は第66回日本臨床外科学会総会(2004年10月、盛岡)において発表した。

## 文 献

- 1) Hawkins WJ, Jackman RJ : Developmental cysts as a source of perianal abscess, 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) Whittaker LD, Pemberton JD : Tumors ventral to the sacrum. *Ann Surg* **107** : 96—106, 1938
- 4) Peyron A : Les vestiges embryonnaires de la re-

- gion. Sacro-coccygienne et leur role dans la production des kystes ou tumeur d'origine congenitale. Bull Assoc Fr Etud Cancer 17 : 613—632, 1928
- 5) 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
  - 6) 石井 修, 吉田靖彦, 坂下吉弘ほか : Tailgut cyst の1乳児例. 日小児外会誌 31 : 633—637, 1995
  - 7) 森谷行利 : Tailgut cyst の1例. 日本大腸肛門病会誌 55 : 31—37, 2002
  - 8) 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
  - 9) 中川国利, 鈴木幸正, 豊島 隆ほか : Tailgut cyst の1例. 消外 23 : 519—523, 2000
  - 10) 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
  - 11) 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. 日本大腸肛門病会誌 54 : 551—556, 2001
  - 12) Murayama A, Murabayashi K, Hayashi M et al : Adenocarcinoma arising in a tailgut cyst. Surg Today 28 : 249—251, 1998
  - 13) 増田益功, 大野一英, 升田吉雄ほか : Tailgut cyst の1例. 日臨外会誌 64 : 3216—3220, 2003
  - 14) 竹重元寛, 上杉尚正, 山口栄一郎ほか : Tailgut cyst の1例. 外科 66 : 1722—1726, 2004
  - 15) Abel ME, Nelson R, Prasad ML et al : Parasacro-coccygeal approach for the resection of retrorectal developmental cysts. Dis Colon Rectum 28 : 855—858, 1985
  - 16) Ballantyne EN : Sacrococcygeal tumors. Arch Pathol 14 : 1—9, 1932
  - 17) Crowley LV, Page HG : Adenocarcinoma arising in presacral enterogeneous cyst. Arch Pathol 69 : 64—66, 1960
  - 18) Levert LM, Van Rooyen W, Van Den Bergen HA : Cyst of the tailgut. Eur J Surg 162 : 149—152, 1996
  - 19) Marco V, Fernandez-Layos M, Autonel J et al : Retrorectal cyst-hamartomas : report of two cases with adenocarcinoma developing in one. Am J Surg Pathol 6 : 707—714, 1982
  - 20) Hjermstad BM : Tailgut cyst and carcinoma. Mil Med 150 : 218—220, 1985

### A Case of Tailgut Cyst Associated with Malignant Findings

Mitsuyoshi Tei, Kimimasa Ikeda, Masashi Kitada,  
Masato Hanada\* and Takashi Shimano

Department of Surgery and Department of Pathology\*, Toyonaka Municipal Hospital

We report a very rare case of tailgut cyst associated with malignant findings. A 33-year-old woman was seen for metrorrhagia, in which a cystic pelvic tumor was found in ultrasonography and MRI. The tumor, located in the presacral space, adhered firmly to the coccyx. We resected the cystic tumor through a transabdominal approach. The pathological diagnosis was a tailgut cyst with mucinous carcinoma including epithelial cells.

**Key words** : tailgut cyst, presacral cyst, developmental cyst

[Jpn J Gastroenterol Surg 40 : 152—156, 2007]

**Reprint requests** : Mitsuyoshi Tei Department of Surgery, Toyonaka Municipal Hospital  
4-14-1 Shibahara-cho, Toyonaka, 560-8565 JAPAN

**Accepted** : May 31, 2006