

症例報告

直腸原発奇形腫の1例

虎の門病院消化器外科

田中 毅 的場周一郎 澤田 壽仁 春田周宇介
戸田 重夫 森山 仁 横山 剛 橋本 雅司
宇田川晴司 渡邊 五朗

今回、我々は直腸原発奇形腫の1例を経験したので報告する。症例は34歳の女性で、下血を認めたため大腸内視鏡検査を施行し、肛門輪より8cmのRa前壁に毛髪を伴った易出血性の1/4周性の隆起性病変を認めた。MRIでは直腸前壁から腹側に突出し、造影効果のはっきりしない径約3cmのmass lesionが見られ、脂肪成分を含む腫瘍性病変が疑われた。直腸奇形腫の診断にて低位前方切除を施行したが、腫瘍と子宮の癒着剥離は困難であり子宮を合併切除した。病理組織学的検査では直腸壁内、漿膜下層主に嚢胞形成を認め、内腔には壊死物、毛髪を入れ周囲には膿瘍形成がみられた。嚢胞内面を覆う上皮成分、毛嚢組織、皮膚付属組織は明らかではなく毛髪以外に奇形腫成分はみられなかった。また、卵巣構造、悪性所見、未熟成分も認めず、直腸壁漿膜下層より発生したcystic teratomaが直腸内腔に破裂したものと考えられた。

はじめに

奇形腫は内・中・外胚葉由来の組織を有する腫瘍で、その好発部位は卵巣と睾丸が最も多い。ついで縦隔、後腹膜、仙尾部、頸部など体の正中線上が多く、直腸原発の奇形腫は極めてまれである¹⁾。今回、我々は直腸原発の奇形腫を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：34歳、女性

主訴：下血

既往歴：急性骨髄性白血病(M0)にて臍帯血移植施行(06年4月、5月)。

家族歴：特記なし。

現病歴：07年4月、下血精査目的にて大腸内視鏡検査を施行したところ、肛門輪より8cmのRa前壁に毛髪を伴った易出血性の隆起性病変を認めたため当科へ紹介となった。

入院時現症：身長152.0cm、体重35.8kg、血圧102/78mmHg、脈拍80回/分、整。胸腹部身体所

Fig. 1 A tumor with a hair ball that fled easily was found in the anterior rectum about 8cm from the anal verge in colonoscopy.

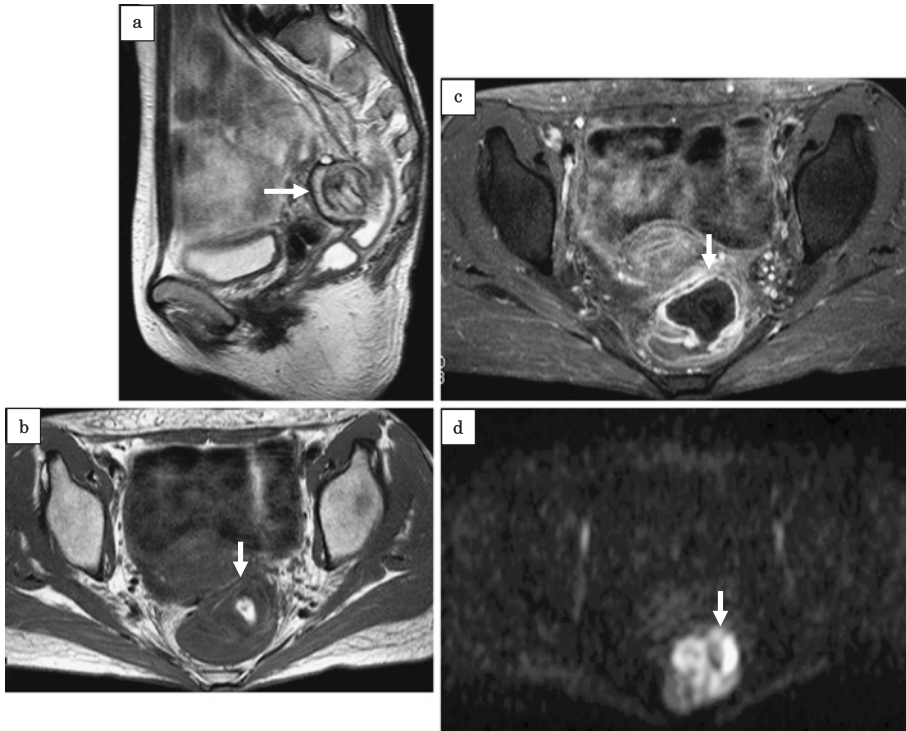


見に異常なし。

入院時検査所見：血液一般検査にてHb 10.5 mg/dlと軽度貧血を認め、生化学的検査においてはTP 5.4g/dl、Alb 2.6g/dlと低栄養を認めるほか、異常を認めなかった。

大腸内視鏡検査：肛門輪より8cm、直腸前壁に2~3cm大で内部に毛髪を伴った易出血性の隆起

Fig. 2 Magnetic resonance imaging showed a tumor protruding from the anterior wall of the rectum to ventral side. The tumor showed high intensity in T1-weighted imaging (a, b), and low intensity in T2-weighted fat suppressed imaging (c), which was markedly enhanced in diffusion imaging (d).



性病変を認め、直腸前壁は Rb-a にて正常粘膜面が一部壁外性に圧排されていた (Fig. 1)。

腹部造影 MRI：直腸前壁から腹側に突出する径約 3cm の造影効果のはっきりとしない mass lesion が見られ、T1 強調画像で内部に高信号が認められた (Fig. 2a, b)。脂肪抑制画像では信号は低下し (Fig. 2c)、脂肪成分を含んでいると考えられた。拡散強調像では強い高信号に描出され腫瘍性病変が疑われた (Fig. 2d)。

手術所見：腹腔鏡にて観察したところ少量の腹水、骨盤内の癒着を認めた。腫瘍は Ra に認めた。ダグラス窩には強固な癒着を認め、腫瘍と子宮の癒着剥離は困難であったため開腹へ移行した。子宮を合併切除した後、直腸を腫瘍から十分な margin をとれるまで剥離し TLH 30mm にて前方切除を施行した。CDH 29mm を用いて DST で再建し、横行結腸にて予防的人工肛門を造設し手術を

終了した。

切除標本：直腸 Ra に毛髪を伴う嚢胞性病変を認め、hair ball 様毛髪集塊が粘膜面に露出した形でみられた (Fig. 3a, b)。

病理組織学的検査：病変は直腸腔内、漿膜下層を主に嚢胞を形成し、内腔には壊死物質、毛髪を入れ、周囲には膿瘍形成が認められた (Fig. 4a)。膿瘍部分には高度の炎症細胞浸潤がみられ、多数の毛髪が散見された (Fig. 4b)。嚢胞内面を覆う上皮成分、毛嚢組織、皮膚付属組織は明らかではなかった。悪性所見、未分化成分も認めず、直腸原発の奇形腫と診断した。

術後経過：07 年 8 月、人工肛門を閉鎖し再発なく経過中である。

考 察

直腸原発の奇形腫は 1864 年の Snyers の報告以来、2000 年の Takao ら¹⁸⁾ の集計によると 48 例

Fig. 3 Macroscopic view of the resected specimen showed cystic tumor with a hair ball in the rectum (a, b). The tumor was ruptured into rectum from the rectal wall (c, d).

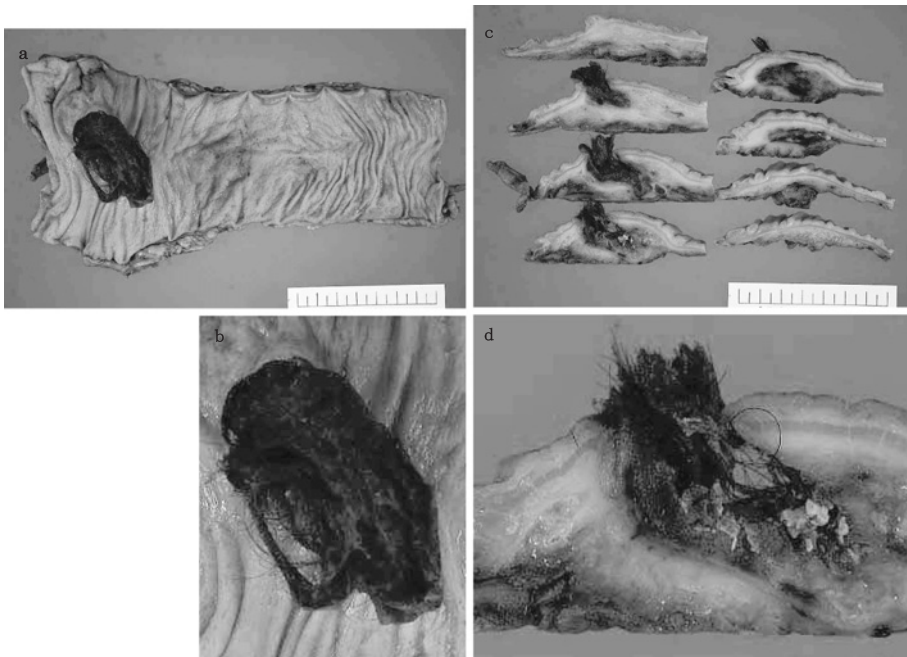
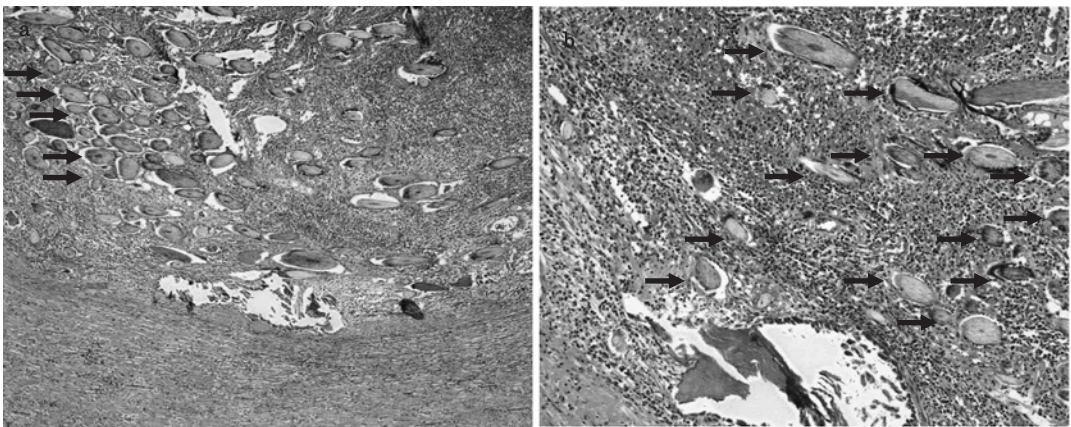


Fig. 4 Microscopic findings showed that the cystic tumor had necrotic factor and hair (arrow) in the cavity (a, b) (H.E. stain $\times 100$).



の報告がある。医学中央雑誌にて「奇形腫」,「直腸」をキーワードとして1983年から2007年まで検索したところ会議録を含めて13例^{9)~21)}の報告があった。また, PubMedにて「teratoma」,「rectum」で1997年から2007年まで検索したところ本邦3例^{9)~21)}, 欧米1例²²⁾の報告がみられた。Takaoら¹⁸⁾

の報告以降, 4例(本邦3例+欧米1例)認めており, これに本症例を加えて, 2007年までに53例の報告がある。このうち, 本邦では1914年の長谷川²⁾の報告以来, 本症例を含めて21例の報告がみられる (Table 1)^{2)~21)}。

直腸原発の奇形腫は1例を除き²³⁾すべて女性

Table 1 Reported 21cases of primary rectal teratoma and/or dermoid cysts in Japan

Case and author	Age/ Sex	Symptoms and signs	Location of tumor	Tumor size and growth pattern	Approach for resection
1. Hasegawa (1914) ²⁾	44/F	hair prolapse	Rb/ anterior	? / polypoid, stalk (+)	Transsacral
2. Mori (1928) ³⁾	32/F	tumor prolapse, anal bleeding	Rb/ anterior	7cm/ polypoid, stalk (+)	transanal
3. Suzuki (1936) ⁴⁾	41/F	abdominal tumor	R/ anterior	size of infant's head/ cystic, stalk (-)	transabdominal
4. Furuhashi (1954) ⁵⁾	39/F	lumbago	R/?	fst-size/ polypoid, stalk (+)	transabdominal
5. Kawamura (1961) ⁶⁾	43/F	constipation, anal bleeding	R/ anterior	hen egg-size/ polypoid, stalk (+)	Miles operation
6. Toyota (1968) ⁷⁾	19/F	bloody stool, constipation	R/ anterior	6 × 5 × 5cm/ polypoid, stalk (+)	Transanal
7. Saji (1973) ⁸⁾	52/F	anal bleeding, diarrhea	R/ anterior	3.5 × 3.0cm/ polypoid, stalk (+)	transabdominal (Pull through modified method)
8. Orii (1985) ⁹⁾	66/F	constipation	Rs/ posterior	3.7 × 3.4 × 2.7 & 2.1 × 1.5 × 1.3cm/ polypoid, stalk (+ / -)	endoscopic
9. Miyashita (1985) ¹⁰⁾	51/F	abdominal pain, anal bleeding	R/ anterior	4.8 × 1.8 × 1.5cm/ polypoid, stalk (?)	transsphincteric
10. Hase (1985) ¹¹⁾	53/F	bloody vaginal discharge	R/ anterior	8.0 × 5.5 × 4.0cm/ polypoid, stalk (?)	Miles operation
11. Hasebe (1988) ¹²⁾	65/F	constipation, dysuria	Ra/ anterior	8 × 6 × 4cm/ stalk (+)	Transsacral
12. Yasukawa (1990) ¹³⁾	27/F	abdominal tumor	R/ posterior	fst-size/ cystic, stalk (-)	transabdominal
13. Kisu (1990) ¹⁴⁾	76/F	melena	Rs/ anterior	3.3 × 2.5 × 2.4cm/ polypoid, stalk (+)	transabdominal
14. Ihara (1992) ¹⁵⁾	64/F	constipation, abdominal pain	Rs/ right wall	? / polypoid, stalk (+)	Transabdominal
15. Otomo (1993) ¹⁶⁾	67/F	constipation	Ra/?	1.8 × 1.6 × 1.8cm/ stalk (+)	endoscopic
16. Tabuchi (1995) ¹⁷⁾	39/F	anal bleeding	Ra/ anterior	2.5 × 2.1 × 1.3cm/ polypoid, stalk (+)	endoscopic
17. Takao (2000) ¹⁸⁾	74/F	bloody stool	R/ right wall	1.2 × 0.9cm/ polypoid, stalk (+)	endoscopic
18. Sone (2000) ¹⁹⁾	48/F	abdominal tumor	R/ right wall	4.5cm/ cystic, stalk (-)	laparoscopic
19. Sakurai (2000) ²⁰⁾	30/F	pelvic tumor	Rb/ posterior	10.0 × 8.0cm/ cystic, stalk (-)	transabdominal
20. Awata (2003) ²¹⁾	83/F	anemia	Rb/ anterior	4.5 × 3.1 × 3.0cm/ polypoid, stalk (+)	transanal
21. Present case	34/F	bloody stool	Ra/ anterior	3cm/ cystic, stalk (-)	transabdominal

で、年齢は20～40歳代に多くみられる。腫瘍の形態は有茎性ポリープのものと、粘膜下嚢胞として認められるものがあるが、ポリープ状の発育をするものが多い。初発症状は肛門より腫瘍あるいは毛髪が脱出、出血、便秘、排便障害、下腹部痛などで腹部腫瘍は少ない。診断としては直腸指診、注腸造影検査なども有用であるが、内視鏡検査による毛髪の観察や、生検にて扁平上皮が採取されれば有力な指針となる²⁴⁾。充実性あるいは嚢胞性腫瘍の場合には腹部単純写真、超音波検査、CT写真にて内部に石灰化像や骨像が認められる場合もある。悪性腫瘍との鑑別は重要ではあるが、直腸奇形腫はこれまで全例が良性で悪性奇形腫の報告例はない。治療としては有茎状ポリープを呈するものが多く内視鏡的切除も可能であるが、本例のように外科的切除が必要となることもある。外科的切除の方法としては経腹、経仙骨、経括約筋、経肛門アプローチがある²²⁾。

消化管に原発する奇形腫も、その発生は卵巣などの奇形腫と同様に生殖細胞由来と考えられるが、生殖細胞は本来、消化管には存在せず、胎生期の組織芽が腫瘍状に発育したという説も有力であり、議論の分かれるところである¹⁾。腸奇形腫の術中所見で、奇形腫と卵巣との間に索状物あるいは疎性結合織を認めたという報告例¹⁴⁾もあり、生殖細胞の迷入の痕跡とも考えられる。また、直腸、S状結腸など下腹部に奇形腫が認められる場合、卵巣の奇形腫が腸管に穿破していることがあり²⁵⁾²⁶⁾、消化管原発との鑑別が必要である。

本症例は術前には卵巣原発の奇形腫、直腸穿破が疑われたが、腫瘍は直腸壁との連続性があり、卵巣成分を認めなかったことより直腸壁に発生したcystic teratoma (dermoid cyst)が直腸内腔に破裂したものと考えられた。

文 献

- 恩田雅彦, 高崎秀明: 腸奇形腫. 別冊日本臨床. 領域別症候群6. 日本臨床社, 大阪, 1996, p431—433
- 長谷川寛治: 直腸「デルモイード」ニ就テ. 日病理会誌 3: 473—474, 1913
- 森 武美: 直腸ニ發生セル畸形茸腫ノ1例. 日外会誌 20: 605—609, 1928
- 鈴木庄一: 直腸壁より發生せる畸形腫の1例. 東京医事雑誌 2998: 2502—2511, 1936
- 古橋健司, 佐川秀逸: 妊娠13週に見たる直腸に発生せりと思われる皮様嚢腫の1例. 産婦の世界 6: 548—549, 1954
- 河村栄二, 樋口公明, 久田太郎: 直腸に発生した奇形腫の1例. 臨外 16: 673—675, 1961
- 豊田哲夫, 森 正穂, 川越常盤ほか: 直腸内腔に発生した奇形腫の1治験例. 外科 30: 624—627, 1968
- 佐治薫豊, 田中正雄, 佐藤好永ほか: 直腸奇形腫について. 外科診療 15: 346—352, 1973
- 折居正之, 松谷富美夫, 柏原紀文ほか: 内視鏡的に摘出した直腸原発奇形腫の1例. 胃と腸 20: 323—328, 1985
- 宮下功次, 椎木滋雄, 黒瀬匡雄ほか: 直腸奇形腫の1例. 日消誌 82: 2190, 1985
- 長谷祐治, 中川浩之, 石井康祐ほか: 直腸壁にみられた奇形腫の1例. 日消誌 82: 2670, 1985
- 長谷部行健, 本田亮一, 鷲沢尚宏ほか: 経仙骨的に切除した直腸原発奇形腫の1例. 日臨外医会誌 49: 2371—2375, 1988
- 泰川恵吾: 直腸後壁(仙骨前方)に発生した teratoma の1例. 東女医大誌 60: 370, 1990
- 木須達郎, 徳永 蔵, 山岡宏太郎ほか: 直腸原発と思われる奇形腫の1例. 胃と腸 25: 361—365, 1990
- 井原 司, 村石信男, 今村博仁ほか: 直腸原発奇形腫の1例. 日消誌 89: 2339, 1992
- 大友正隆, 伊藤喜和, 岡部直衛ほか: 内視鏡的ポリペクトミーにより摘除できた直腸奇形腫の1例. 消内視鏡 5: 1245—1249, 1993
- Tabuchi Y, Tsunemi K, Matsuda T: Variant type of teratoma appearing as a primary solid dermoid tumor in the rectum: report of a case. Surg Today 25: 68—71, 1995
- Takao Y, Shimamoto C, Hazama K et al: Primary rectal teratoma: EUS features and review of the literaturere. Gastrointest Endosc 51: 353—355, 2000
- 曾根 知, 永井優子, 小西光長ほか: 腹腔鏡下手術にて摘出した直腸に発生した成熟奇形腫の1例. 産婦の進歩 52: 860, 2000
- Sakurai Y, Uraguchi T, Imazu H et al: Submucosal dermoid cyst of the rectum: report of a case. Surg Today 30: 195—198, 2000
- 粟田浩史, 泉 俊昌, 藤島由佳ほか: 直腸奇形腫の1例. ENDOSC FORUM digest dis 19: 84—88, 2003
- Chwalinski M, Nowacki MP, Nasierowska-Guttmejer A et al: Anorectal teratoma in adult woman. Int J Colorectal Dis 16: 398—401, 2001
- Aldridge MC, Boylston AW, Sim AJW: Dermoid cyst of the rectum. Dis Colon Rectum 26: 333—334, 1983

- 24) 折居正之, 松谷富美夫: 直腸原発奇形腫. 臨消内科 21: 497—502, 2006
- 25) 蜂谷 勉, 小味淵智雄, 樋口 拓ほか: S状結腸に穿通した卵巣奇形腫の1症例. Gastroenterol En-

dosc 24: 325—329, 1982

- 26) 佐々木宏晃, 長廻 紘, 原田瑞也ほか: 直腸内腔に穿通した卵巣奇形腫の1例. Prog Dig Endosc 13: 227—228, 1978

A Case of Primary Cystic Teratoma in the Rectum

Tsuyoshi Tanaka, Syuichiro Matoba, Toshihito Sawada, Syusuke Haruta,
Shigeo Toda, Jin Moriyama, Tsuyoshi Yokoyama, Masaji Hashimoto,
Harushi Udagawa and Goro Watanabe
Department of Gastroenterological Surgery, Toranomon Hospital

We report the rare case of a 34-year-old woman with primary cystic teratoma of the rectum, pinpointed in a colonoscopy. A tumor with a hair ball that fled easily was found in the anterior rectum about 8cm from the anal verge in colonoscopy. Magnetic resonance imaging showed a tumor protruding from the anterior wall of the rectum to ventral side. The tumor showed high intensity in T1-weighted imaging, and low intensity in T2-weighted imaging, which was markedly enhanced in diffusion imaging. Laboratory findings showed anemia, and poor nutrition. At laparoscopy, the tumor was found at Douglas fossa with highly adhesion with uterus, necessitating open total uterectomy and low anterior resection. The tumor was resected en-block with the uterus and rectum. Histopathological findings showed cystic teratoma ruptured into the rectum from the rectal wall.

Key words : teratoma, dermoid cyst, rectum

[Jpn J Gastroenterol Surg 42 : 227—232, 2009]

Reprint requests : Tsuyoshi Tanaka Department of Gastroenterological Surgery, Toranomon Hospital
2-2-2 Toranomon, Minato-ku, 105-8470 JAPAN

Accepted : June 18, 2008