

排尿障害を契機に発見された骨盤内類表皮嚢胞の1例

鳥取大学医学部器官制御外科学講座腎泌尿器学分野

山根浩史*・本田正史・西川結梨・清水龍太郎・寺岡祥吾
西川涼馬・木村有佑・弓岡徹也・岩本秀人・森實修一
引田克弥・武中 篤

(受付日: 2020年6月10日, 受理日: 2020年9月25日)

抄録:

症例は84歳, 男性。2017年, 排尿困難を主訴に近医を受診した際に骨盤内嚢胞性腫瘍を指摘された。近医受診時には前立腺部尿道への腫瘍圧迫による尿閉, 両側水腎症の状態であり, 尿道カテーテル留置となった。同年10月, 手術目的に当院へ紹介となった。CT画像, MRI画像では前立腺尾側, 膜様部尿道から球部尿道にかけて7 cm×9 cm×10 cm径の単房性嚢胞性腫瘍を認めたが, 画像所見上は積極的に悪性を疑う所見を認めなかった。2018年1月, 骨盤内腫瘍摘除術を施行した。体位は碎石位, 下腹部正中切開にて, 前立腺と腫瘍の間を剥離展開し, 骨盤内から可能な限り剥離を行った後に, 会陰からの切開を追加し, 骨盤内と会陰側の双方からの操作にて摘出可能であった。病理組織は類表皮嚢胞であった。術後は, 自排尿可能となった。術後2年経過した時点で再発所見はなく, 外来にて経過観察を継続している。今回我々は, 排尿障害を契機に発見された骨盤内類表皮嚢胞の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。

(西日泌尿, 82: 518-521, 2020)

キーワード: 類表皮嚢胞, 排尿障害, 外科治療

緒 言

類表皮嚢胞 (epidermoid cyst) は, 汗腺などの皮膚付属器を伴わない皮膚様の組織に裏打ちされた壁を持つ嚢胞であり, 前仙骨部にできるものは胎児期遺残 (caudal end) が発生母地となる。無症状で経過することも多く, 腫瘍の増大に伴う周囲臓器の圧迫症状により発見されることも多いとされる。今回我々は, 排尿障害を契機に発見された骨盤内類表皮嚢胞の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 84歳, 男性

主訴 排尿困難

家族歴 特記事項なし

現病歴 2017年8月, 排尿困難を主訴に前医を受診し, エコーで両側水腎症を指摘された。排便障害は認めなかった。CT画像で骨盤底右側から会陰部にかけて長

径約10 cm径の嚢胞性腫瘍を指摘された。前医にて会陰部より針生検を施行されたが, 質的診断には至らず, 同年10月に精査加療目的に当科紹介となった。

入院時現症 身長155.3 cm, 体重47.5 kg, BMI 19.7 kg/m², 体温36.3℃, 血圧126/74 mmHg, 会陰部より腫瘍を触知した。

入院時検査所見 血液検査ではD-dimerの軽度高値 (D-dimer 1.7 µg/mL) を認めたが, その他は特記所見は認めなかった (WBC 5,000 /µL, Hb 12.2 g/dL, Na 142 mmol/L, K 4.5 mmol/L, Cl 105 mmol/L, BUN 16.7 mg/dL, Cre 0.71 mg/dL, Glu 96 mg/dL, CRP 0.09 mg/dL, D-dimer 1.7 µg/mL, APTT 26.6 秒, PT-INR 0.94)。尿検査では膿尿 (WBC 50-99/HPF) と顕微鏡的血尿 (RBC 30-49/HPF), 細菌尿を認め, 尿培養からは *Stenotrophomonas*, *Staphylococcus epidermidis* が検出された。尿細胞診はclass IIだった。

画像検査所見 CT: 骨盤底右側に7 cm×9 cm×10 cm径の嚢胞性腫瘍を認めた。膀胱は頭側へ, 直腸は左後方へ, 前立腺は左側へ圧排されていた。腫瘍内部に濃染される充実部はなく, 悪性を示唆する所見は認めなかった (Fig. 1 A, B)。MRI: T2強調像で腫瘍内部はやや高信

* 〒683-8503 米子市西町 86
TEL 0859-38-6607, FAX 0859-38-6609
E-mail: yamanehiroshi@tottori-u.ac.jp

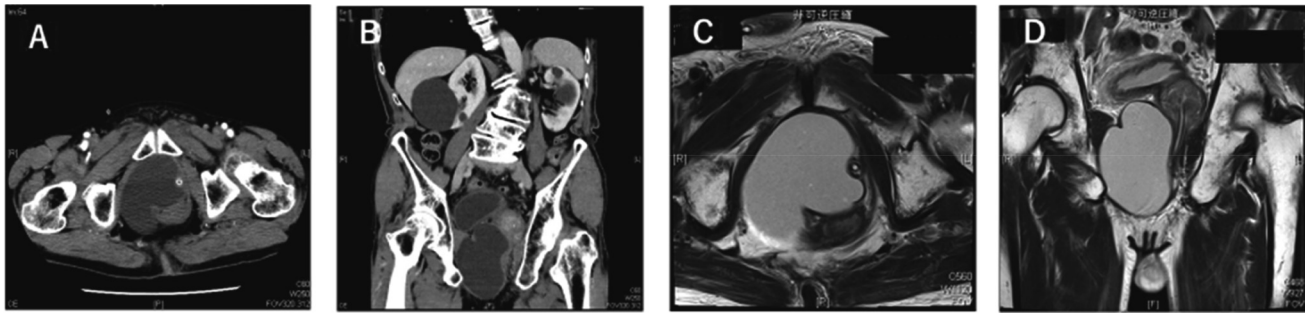


Fig. 1 Enhanced CT (A, B) and enhanced MRI (C, D) show a mass which can be observed from the dorsal side of the right kidney to the intestinal psoas muscle. The margin of the tumor is unclear and irregular.

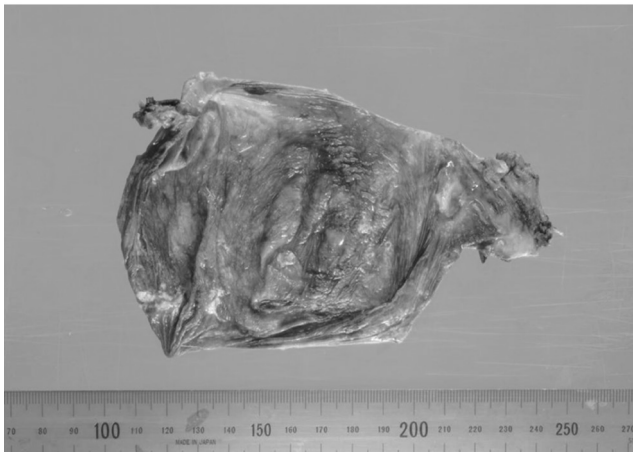


Fig. 2 The tumor is identified as an epidermoid cyst.

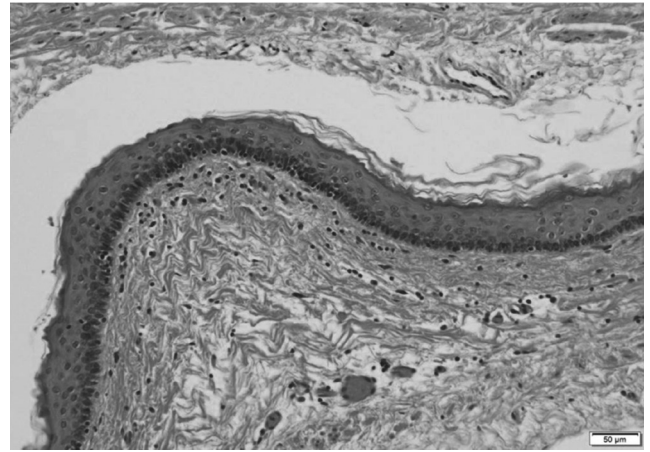


Fig. 3 The cyst wall was lined with stratified squamous epithelium and no skin attachment was found.

号であり、尿道、直腸、前立腺との間に連続性は指摘されなかった (Fig. 1 C, D)。

治療方針 腫瘍は骨盤底に位置していたため、まずは下腹部切開によるアプローチを行い、摘除困難であれば、必要に応じて会陰部からのアプローチを追加する方針とした。癒着が強く、腫瘍のみの摘出が困難であれば、嚢胞壁の術中迅速病理を提出し、悪性所見を認めなければ腫瘍の部分切除を、悪性所見を認めれば周囲臓器との合併切除を検討する方針とした。

手術所見 全身麻酔下にて体位は碎石位とし、まず両側尿管ステント留置を行った。臍下から恥骨上縁まで下腹部正中切開をおき、レチウス腔から後腹膜腔を展開した。鈍的、鋭的に腫瘍周囲の剥離を行い、膀胱との境界部分まで剥離したところで会陰部からのアプローチを追加した。会陰部に約5 cmの縦切開をおき、骨盤内の腫瘍を確認した。会陰部より鈍的に剥離を行い、骨盤内と双方向より腫瘍周囲剥離を行った。途中、腫瘍壁の一部を損傷し、粘土状の内容物の露出を認めたため、腫瘍壁の

一部を術中迅速病理検査に提出したが悪性所見は認めなかった。腫瘍摘除後、生理食塩水 3,000 ml で洗浄を行い、腫瘍摘除腔にドレーンを留置した。手術時間3時間40分、出血量 200 ml、術中合併症なく手術を終了した。

摘出標本 摘出標本重量 240 g (Fig. 2)。

病理学的所見 嚢胞内部は皮膚様の組織で覆われており、汗腺などの皮膚付属器は認められず、重層扁平上皮が嚢胞壁を裏打ちしていた。病理診断は類表皮嚢胞であった。病理学的には嚢胞の発生母地は指摘されなかった (Fig. 3)。

術後経過 術後10日目に尿道カテーテルを抜去し、抜去後は尿閉に近い状態であり導尿が必要であった。徐々に自排尿は改善し、術後23日目に退院となった。また、術後より腹圧時の便失禁を認めたが、術後90日目には症状は改善した。現在、術後約2年となるが、再発なく経過している (Fig. 4 A, B)。

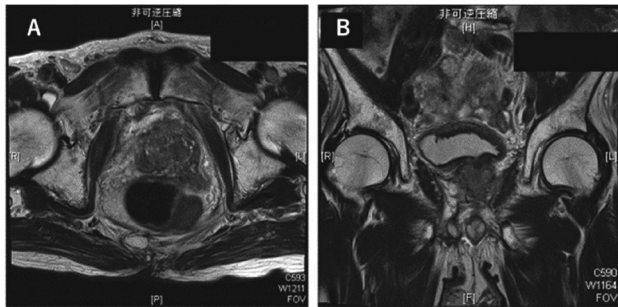


Fig. 4 Postoperative MRI (A, B)

考 察

前仙骨部の腫瘍を Jackman ら¹⁾ は先天性、炎症性、神経原性、骨原性、その他の5つに分類し、さらに Hawkins ら²⁾ は、先天性腫瘍の中で嚢胞状腫瘍であるものを発達性嚢胞 (development cyst) と定義している。発達性嚢胞は胚葉形成段階における発達異常に起因するものとされ、胎児期遺残を発生母地とする。発達性嚢胞は類皮嚢胞 (47.5%)、類表皮嚢胞 (40.0%)、粘液産生嚢胞 (12.5%) に分類され、組織学的に類表皮嚢胞、粘液産生嚢胞は汗腺などの皮膚付属器を伴わないとされている。本症例では、嚢胞壁は皮膚付属器を伴わない重層扁平上皮に裏打ちされており、類表皮嚢胞の診断であった。また病理学的に嚢胞の発生母地は指摘されなかったが、術中所見では嚢胞と Denonvilliers 筋膜との間に強固な癒着を認めた。前仙骨部に発生する類表皮嚢胞は比較的稀とされており、本邦での報告例は医中誌 web で検索したところ、2011 年 7 月の時点で 76 例であった。

前仙骨部の腫瘍は、感染症を合併していなければ無症状で経過する例も多く、検診などで偶発的に発見されることが多い。約半数の症例は無症状であるとの報告もあるが³⁾、有症状の場合は肛門部違和感、下腹部痛、排尿障害、便秘などの他臓器の圧迫症状を起こす可能性がある⁴⁾と報告されている。本症例では、腫瘍による下部尿路の機械的な圧迫により尿閉、両側水腎症を来していた。尿道カテーテル留置により尿閉は解除され、腎機能は正常範囲まで改善した。

診断にはエコー、CT 画像、MRI 画像が有用である。MRI 画像では、特に類表皮嚢胞では典型的には内部均一で、T1 強調像で低信号、T2 強調像で高信号、拡散強調画像 (DWI) では高信号を示す。良悪性の判別に MRI 画像が参考になる可能性がある。嚢胞壁の不整な肥厚や、腫瘍の不均一な造影効果などが悪性を示唆する所見との報告もあるが⁵⁾、病理診断とは必ずしも一致せ

ず、あくまで参考程度としかならないことに注意が必要である。術前の生検、もしくは吸引細胞診は、悪性であった場合に腫瘍細胞の播種の恐れがあることや、嚢胞内に二次感染を起こす可能性があることから、推奨されないという意見が多い⁶⁾。実際に永野ら⁷⁾の症例では、術前穿刺吸引細胞診で扁平上皮癌の診断を得て手術に臨み、術後約 1 年で局所再発を認めたと報告されている。しかしその症例では、術中に嚢胞壁の一部を損傷し、嚢胞内容物の流出を認めている。したがって必ずしも術前の穿刺が播種の原因となったとは言えないが、その適応は慎重に検討されなければならない。

治療は原則として、手術による腫瘍の外科的切除である。術前の良悪性の診断が困難であるため、場合によっては周囲臓器の一部も含めた合併切除が必要となる可能性もある。腫瘍への到達方法として、経腹的アプローチ、経仙骨アプローチ、経腹および経仙骨アプローチが挙げられる。経仙骨アプローチは、腫瘍を直視下に観察することができるが、腫瘍径が大きい場合には術野の確保が難しい傾向がある。また、創部が肛門周囲に近いことで感染症のリスクが高いとされている。経腹的アプローチでは、腫瘍径の大きい腫瘍でも摘出することが可能であるが、腹腔内癒着の想定される症例では選択されにくい。さらに腹腔内臓器損傷、術後イレウスなどの合併症を起こす可能性もある。Localio ら⁸⁾は腫瘍性 8 cm 以下が経仙骨アプローチの適応であるとしているが、明確な基準はなく、症例ごとに適切なアプローチ方法を検討する必要がある。

本症例においては、経腹と経仙骨の双方のアプローチを行うことで、8 cm を超える大きな腫瘍に対して安全に手術を行うことが可能であった。

結 語

排尿障害を契機に発見された骨盤内類表皮嚢胞の 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告した。

本論文の要旨は第 127 回日本泌尿器科学会山陰地方会にて発表した。

文 献

- 1) Jackman, R. J. et al.: Retrorectal tumors. JAMA. **145**: 956-962, 1951.
- 2) Hawkins, W. J. and Jackman, R. J.: Developmental cysts as a source of perianal abscesses, sinuses and fistulas. Am. J. Surg. **86**: 678-683, 1953.
- 3) Dahan, H. et al.: Retrorectal developmental

- cysts in adults: clinical and radiologic-histopathologic review, differential diagnosis, and treatment. *Radiographics*. **21**: 575-584, 2001.
- 4) 森洋一郎・他：高齢者の巨大な仙骨前部 epidermoid cyst の1例. 日臨外会誌. **68**: 2383-2387, 2007.
- 5) 佐藤正幸：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. **48**: 145-151, 2015.
- 6) 森隆太郎・他：成人仙骨前類表皮嚢胞の1例と本邦報告例の集計. 日外科系連会誌. **35**: 665-669, 2010.
- 7) 永野靖彦・他：成人仙骨前類表皮嚢胞に発生した扁平上皮癌の1例. 日臨外会誌. **59**: 2695-2699, 1998.
- 8) Localio, S. A. et al.: Abdominosacral approach for retrorectal tumors. *Ann. Surg.* **191**: 555-559, 1980.

GIANT EPIDERMOID CYST WITHIN THE PELVIS DETECTED DUE TO A URINATION DISORDER : A CASE REPORT

HIROSHI YAMANE, MASASHI HONDA, YURI NISHIKAWA,
RYUTARO SHIMIZU, SHOGO TERAOKA, RYOMA NISHIKAWA,
YUSUKE KIMURA, TETSUYA YUMIOKA, HIDETO IWAMOTO,
SHUICHI MORIZANE, KATSUYA HIKITA AND ATSUSHI TAKENAKA

Division of Urology, Department of Surgery, Faculty of Medicine, Tottori University, Tottori, Japan

Abstract:

In 2017, an 82-year-old man consulted his primary care doctor about the chief complaint of dysuria, and a cystic mass within the pelvis was discovered. At the time of medical examination, due to compression by the mass, the patient was suffering from urinary retention and bilateral hydronephrosis, and was under urethral balloon management. In October of the same year, the patient was introduced to our hospital for surgery. CT and MRI images showed a single-celled cystic mass (7 cm×9 cm×10 cm) from the prostatic caudal side, extending from the membranous urethra to the bulbar urethra, but no evidence of malignancy was found on the images. Surgery was performed in January 2018. The body was placed in the lithotomy position and a lower abdominal midline incision was made, and the prostate and the mass were resected. After resection was performed as much as possible, additional incisions were made from the perineum and further resection was performed from both the pelvis and the perineum. Although adhesion between the mass and surrounding organs was mild, strong adhesion was found with the Denonvilliers fascia. Pathological diagnosis of the tissue revealed epidermoid cyst. After urethral balloon withdrawal, urination gradually improved. During the two years since the operation, there has been no recurrence, but the patient remains under observation as an outpatient.

(Nishinoh J. Urol. **82**: 518-521, 2020)

key words : epidermoid cyst, dysuria, surgical treatment
