

Nietypowo zlokalizowana torbiel epidermalna jako przyczyna proktalgii – opis przypadku

Atypically located epidermoid cyst as a cause of proctalgia – a case report

¹Warszawski Ośrodek Proktologii, Szpital św. Elżbiety – Mokotowskie Centrum Medyczne
Kierownik Ośrodka: dr hab. n. med. Małgorzata Kołodziejczak

²Oddział Chirurgii Ogólnej, Powiatowe Centrum Zdrowia, Szpital Bukowiec w Kowarach
Ordynator Oddziału: lek. med. Waćław Warzecha

³Zakład Radiologii, Narodowy Instytut Geriatrii, Reumatologii i Rehabilitacji
im. prof. dr hab. n. med. Eleonory Reicher, Warszawa
Kierownik Zakładu: prof. dr hab. n. med. Iwona Sudoł-Szopińska

⁴Zakład Diagnostyki Obrazowej, II Wydział Lekarski, Warszawski Uniwersytet Medyczny
Kierownik Zakładu: prof. dr hab. n. med. Wiesław Jakubowski

⁵Vitascan Sp. z o.o., Pracownia Rezonansu Magnetycznego, Nysa

Summary

The most common causes of anal pain include inflammatory anal diseases, such as fissure, abscess, perianal thrombus or haemorrhoid complications in the form of grade 4 thrombosed haemorrhoids. The paper presents a female patient with anal pain that persisted for many months and was ineffectively treated symptomatically with anti-inflammatory and analgesic medications. It was found that pain symptoms were caused by a presacral epidermoid cyst. The correct diagnosis was established on the basis of an anorectal examination as well as with endosonography and magnetic resonance imaging. These methods precisely specified the location of the cyst in relation to the rectal wall, which enabled its safe excision from the posterior approach. The patient was discharged in a good overall and local condition in the fifth day after the procedure. The follow-up examination conducted three months afterwards did not show any recurrence, and the patient reported no pain symptoms.

Conclusions. 1. In the case of a patient with chronic proctalgia, atypical causes must be taken into consideration. 2. Imaging examinations should be conducted prior to the surgical procedure in order to optimise treatment outcomes.

Keywords

retrorectal cyst, epidermoid cyst,
proctalgia

WSTĘP

Dolegliwości bólowe odbytu (łac. *proctalgia*) są częstą przyczyną wizyty u proktologa. Do najczęstszych przyczyn *proctalgia* należą choroby zapalne kanału odbytu, takie jak: szczelina, ropień odbytu, zakrzep brzeżny oraz powikłania choroby hemoroidalnej w postaci zakrzepicy guzków krwaw-

niczych IV stopnia. Torbiele przedkrzyżowe nie są częste. Przybliżone statystyki podają, że guzy przestrzeni przedkrzyżowej występują u 1/40 000 hospitalizowanych chorych, z czego niewielki odsetek stanowią torbiele. Torbiele w większości przypadków są bezobjawowe, a jeśli powodują objawy, to są one niespecyficzne (1). Szczególnie torbiele wrodzone

przez wiele lat mogą nie powodować żadnych dolegliwości. Ból może się pojawić w przypadku zainfekowania torbieli, osiągnięcia przez nią dużych rozmiarów czy też przy niskiej lokalizacji torbieli uciskającej na bogato unerwioną bólowo okolicę anorektalną. W artykule przedstawiono przypadek chorej z bólami w odbycie, która przez wiele miesięcy była nieskutecznie leczona objawowo lekami przeciwzapalnymi i przeciwbólowymi, a przyczyną bólów w odbycie była nisko schodząca do okolicy anorektalnej torbiel epidermalna.

OPIS PRZYPADKU

27-letnia chora zgłosiła się do Przychodni Proktologicznej na konsultację z powodu silnych bólów w odbycie występujących od kilkunastu miesięcy i nasilających się przy zmianie pozycji ciała. Pacjentka była leczona zachowawczo lekami przeciwbólowymi i miejscowymi środkami przeciwzapalnymi w postaci czopków i maści. Na stałe przyjmowała leki przeciwpadaczkowe z powodu długoletnich napadów padaczki (obecnie bez objawów).

W badaniu przedmiotowym nie stwierdzono odchyłań.

W badaniu proktologicznym przeprowadzonym w pozycji Simsa rozpoznano wyczuwalny opór w szparze międzypośladkowej po stronie tylna-lewej, balotujący, bolesny, zlokalizowany zaodbytniczy, o wielkości piłki tenisowej, który modelował odbytnicę od strony tylna-lewej.

W badaniu endosonograficznym i ultrasonograficznym (USG) tkanek miękkich okolicy zaodbytniczej w rzucie wyczuwalnego zgrubienia uwidoczniono zmianę gęstoptynową, dobrze odgranicezoną, bez cech unaczynienia, o wymiarach 40 mm x 24 mm x 44 mm, zlokalizowaną w szparze pośladkowej, następnie w tkance tłuszczowej zaodbytniczej, przylegającą do tylnego zewnętrznego zarysu mięśnia łonowo-odbytniczego i kończącą się na poziomie anorektum (ryc. 1a-1c). W badaniu metodą rezonansu magnetycznego (MR) w okolicy zaodbytniczo-zaodbytniczej potwierdzono obecność cienkościenną, wysokobiałkową torbieli okołoodbytniczej o długości 48 mm, o typowym sygnale w badaniu MR (ryc. 2a-2c).

Chorą zakwalifikowano do planowej operacji wycięcia torbieli. Wykonano wycięcie torbieli z dostępu tylnego i drenaż

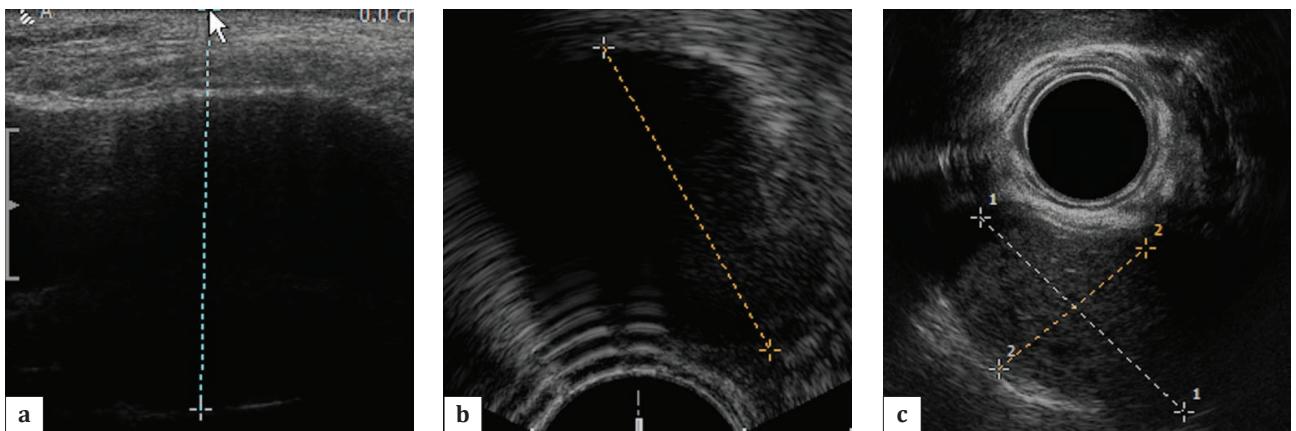
rany sposobem Redona (ryc. 3a-3c, 4, 5). Cięciem między końcem kości guzicznej a zwieraczami poprowadzonym w bruzdzie międzypośladkowej dotarto do tkanek okołoodbytniczych i pod kontrolą palca w odbytnicy wypreparowano torbiel wielkości piłki tenisowej, a następnie usunięto w całości, nie uszkodzając torebki. Po uzyskaniu hemostazy, założono dren Redona. Ranę szczelnie zeszyto warstwowo (tkankę podskórną i skórę), założono opatrunek.

Przebieg po zabiegu był niepowikłany. Pacjentka została wypisana w 5. dobie po operacji w stanie ogólnym i miejscowym dobrym. Kontrola po trzech miesiącach nie wykazała wznowy choroby.

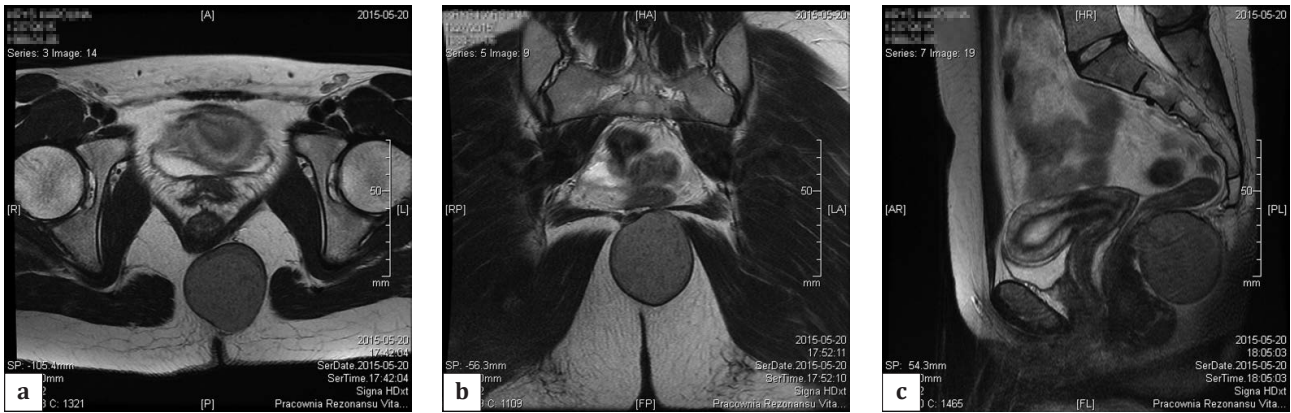
Wynik histopatologiczny: *cystis epidermalis*.

DYSKUSJA

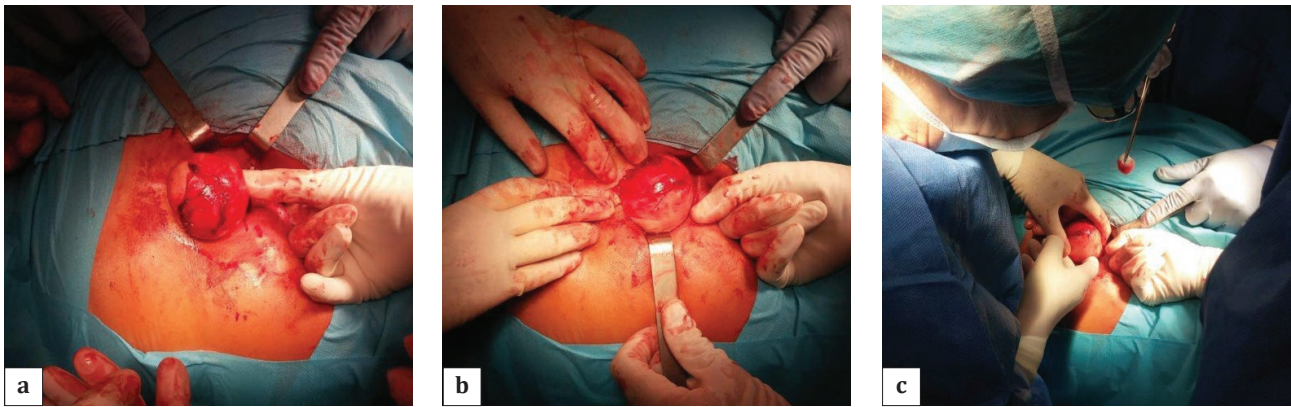
Guzy okolicy przedkrzyżowej i zaodbytniczej występują rzadko, a dokładna ich epidemiologia nie jest znana. Przez swoją lokalizację nie zawsze są łatwe do rozpoznania, nawet wówczas gdy powodują silne dolegliwości bólowe. Szczególnie torbiele o wrodzonej etiologii nie mają typowej symptomatologii, mogą być rozpoznane w sposób przypadkowy, np. podczas badania obrazowego wykonywanego z innego powodu. Torbiele przedkrzyżowe są zlokalizowane w granicach anatomicznych tzw. przestrzeni przedkrzyżowej, które stanowią: od przodu – odbytnica, od tyłu – powięź przedkrzyżowa, kość krzyżowa i kość guziczna, od dołu – mięśnie dźwigacze odbytu, a bocznie – naczynia biodrowe. Przestrzeń ta zawiera tkankę tłuszczową, naczynia i nerwy, m.in. splot przedkrzyżowy L4-S4 (2). W opisanym przypadku torbiel była położona nietypowo, częściowo powierzchownie w tkance podskórnej okolicy zaodbytniczej, a częściowo głęboko w przestrzeni przedkrzyżowej, modelując ścianę odbytnicy. O ile w naszym ośrodku praktycznie wszystkim pacjentom z chorobami zapalnymi odbytu zleca się badania obrazowe miednicy (okolicy odbytniczej), tak przedstawiony przypadek dowodzi, że są one szczególnie wskazane w przypadku nieskuteczności leczenia zachowawczego u chorego z bólem odbytu. Wykonane badania obrazowe dokładnie określiły położenie i odległość torbieli od ściany odbytnicy, co pozwoliło



Ryc. 1. Badania USG: przekroczowe (a), TRUS (b) oraz endosonograficzne (c) przedstawiają torbiel okołoodbytniczą, zlokalizowaną w tkance tłuszczowej zaodbytniczej 3 mm od powierzchni skóry (a), obejmującą całą długość kanału odbytu (b) i modelującą tylną ścianę odbytnicy do głębokości 43 mm (c)



Ryc. 2. Badanie MR miednicy wykonano w sekwencjach FSE, GRE, w obrazach T1-zależnym przed podaniem i po podaniu środka kontrastowego, T2-zależnym i STIR, w trzech płaszczyznach. Na obrazach T2-zależnych FSE, w płaszczyźnie poprzecznej (a, b) i strzałkowej (c), w okolicy zaodbytowo-zaodbytniczej uwidoczniono cienkościenną, wysokobiałkową torbiel okołoodbytniczą o długości 48 mm, o typowym niskim sygnale w obrazie T1-zależnym, pośrednim w obrazie T2-zależnym, niewykazującą cech wzmocnienia kontrastowego. Zmiana przylega do mięśnia łonowo-odbytniczego i do ściany odbytnicy, modeluje i nieznacznie przemieszcza odbytnicę ku przodowi i na prawo



Ryc. 3. Zabieg usunięcia torbieli pod kontrolą palca w odbytnicy



Ryc. 4. Materiał operacyjny – wycięta torbiel epidermalna



Ryc. 5. Zamknięcie rany, drenaż sposobem Redona

na bezpieczne jej usunięcie. Użyteczność badań obrazowych w diagnostyce torbieli przyodbytnicznych podkreślają też inni autorzy. W materiale Glasgow i wsp. (3) czułość proktoskopii w rozpoznawaniu guzów okolicy przedkrzyżowej wyniosła 53%, a po zastosowaniu endosonografii wzrosła do 100%. Badanie ultrasonograficzne pozwala ponadto określić morfologię zmiany, przede wszystkim zróżnicować torbiel prostą z powłokaną oraz ze zmianą litą, a także jej stosunek do narządów sąsiednich, w tym przede wszystkim do ściany odbytnicy (4). Pozwala to zaplanować dostęp operacyjny oraz określić ryzyko uszkodzenia odbytnicy. Rezonans magnetyczny i tomografia komputerowa miednicy z podaniem środka kontrastowego są wskazane w celu potwierdzenia litego charakteru zmiany, stwierdzenia naciekania guza na naczynia i nerwy, co może zmienić zasadniczo taktykę leczenia i prowadzić do odstąpienia od operacji, np. w przypadku naciekania na istotne struktury anatomiczne i nieresekcyjności zmiany.

Torbiele wrodzone mają typowy obraz radiologiczny: są cienkościenne, jedno- albo kilkukomorowe, o klarownej zawartości bądź z treścią śluzową (ang. *mucoïd*). Mają niską gęstość w badaniu tomografii komputerowej, niską echogeniczność w badaniu USG, niski sygnał w MR w obrazach T₁-zależnych i wysoki w obrazach T₂-zależnych. Cienka ściana ulega wzmocnieniu po podaniu kontrastu. Sygnał z torbieli w badaniu MR w obrazach T₁-zależnych może ulec podwyższeniu, gdy torbiel zawiera treść śluzową (5). W przypadku zakażenia ściana torbieli ulega pogrubieniu, wzmocnieniu pokontrastowemu, w jej świetle mogą pojawić się pojedyncze odbicia tkankowe, pasma włókniaka, a nawet gaz – gdy zmiana dojdzie do wytworzenia przetoki. Ogniskowe pogrubienie ściany z cechami wzmocnienia pokontrastowego mogą przemawiać za złośliwym charakterem zmiany (6).

Guzy okolicy przedkrzyżowej podlegają różnym klasyfikacjom. Jedną z podstawowych, najstarszych i najpowszechniej stosowanych – klasyfikacja wg Uhliga i Johnsona – dzieli torbiele na: wrodzone, neurogenne, kostne, zapalne i mieszane (7). Dozois i wsp. (8) uzupełnili powyższy podział o zmiany o charakterze łagodnym i złośliwym. W omawianym przypadku w badaniu histopatologicznym stwierdzono torbiel naskórkową. Zgodnie z tą klasyfikacją torbiel epidermalna (naskórkowa) jest klasyfikowana jako wrodzona zmiana łagodna. Zarówno torbiel naskórkowa, jak i skóra są wynikiem nieprawidłowego rozwoju ektodermy w życiu płodowym. W torbielach skórnych mogą występować charakterystyczne elementy skóry, jak gruczoły potowe i mieszki włosowe. Torbiele naskórkowe różnicować też należy z innymi zmianami torbielowatymi, w tym: endometrialnymi, potworniakami, a także ropniami, które mogą występować w tej okolicy. Pomijając zmiany ropne o dość charakterystycznym obrazie klinicznym i obrazowym, potwierdzenie ich rozpoznania jest możliwe jedynie po wyko-

naniu biopsji histopatologicznej lub w trakcie operacji. Wśród chirurgów istnieją kontrowersje na temat wykonywania biopsji zmian przedkrzyżowych przed operacją. Większość autorów jest zdania, że w przypadku planowania wycięcia zmiany biopsja nie jest konieczna, z uwagi na ryzyko infekcji lub rozsiewu komórek nowotworowych (9, 10). Przeciwnicy tego poglądu uważają, że w przypadku niektórych zmian o charakterze nowotworowym wynik biopsji może zmienić strategię leczenia (np. przedoperacyjna radioterapia). Biopsja może być potrzebna przy przeciwwskazaniach do operacji (np. nieresekcyjność zmiany lub ciężki stan ogólny pacjenta) i planowaniu postępowania paliatywnego (11). W materiale Merchea i wsp. wynik badania histopatologicznego wykonanej przedoperacyjnie biopsji korelował z rozpoznaniem pooperacyjnym w 91% (11). W przypadku naszej pacjentki torbiel usunięto w całości, bez naruszenia ciągłości jej torebki i w całości zbadano materiał histopatologicznie.

Operacja wycięcia cysty przedkrzyżowej może być wykonana z dostępu przedniego poprzez laparotomię oraz tylnego, kroczonego z usunięciem albo zachowaniem kości guzicznej. W szczególnych przypadkach stosuje się dostęp kombinowany (brzuszny i kroczone). Przy planowaniu dostępu operacyjnego istotne jest określenie lokalizacji zmiany. W przypadku położenia dystalnie od poziomu S₃, zaleca się przeprowadzenie zabiegu z dostępu tylnego, zaś powyżej poziomu S₃ – dostępu przedniego. Jeśli zmiana jest rozległa i zajmuje przestrzeń poniżej i powyżej poziomu S₃, konieczny jest dostęp kombinowany. Dostęp przedni może być wykonywany poprzez laparoskopię lub laparotomię (12). W operacji z dostępu przedniego pacjenta układa się w pozycji Lloyda-Davisa (na plecach, z podwieszonymi, ugiętymi nogami). Z kolei dostęp tylny wykonuje się u pacjenta ułożonego w pozycji scyzorykowej. Dostęp tylny może być przezzwieraczowy, przezodbytniczny i przedkrzyżowy. Pozycja pacjenta w dostępie kombinowanym to pozycja lekko lewo-boczna (niezapełnienie na boku, żeby był „dostęp do brzucha”), niektórzy autorzy zalecają, żeby w tych przypadkach operację wykonywały dwa zespoły chirurgiczne. U przedstawionej pacjentki operacja wykonana była z dostępu tylnego przedkrzyżowego (pacjentka w ułożeniu scyzorykowym) pod kontrolą palca w odbytnicy, co pozwoliło na bezpieczne usunięcie torbieli bez uszkodzenia ściany odbytnicy.

WNIOSKI

1. W przypadku chorego z objawem przewlekłego bólu odbytu należy wziąć pod uwagę nietypowe przyczyny dolegliwości.
2. W kwalifikacji do operacji torbieli przedkrzyżowej powinno się wykonać badania obrazowe, w celu optymalizacji wyników leczenia.

Adres do korespondencji

*Małgorzata Kołodziejczak
Warszawski Ośrodek Proktologii,
Szpital św. Elżbiety
– Mokotowskie Centrum Medyczne
ul. Goszczyńskiego 1, 02-616 Warszawa
tel.: +48 (22) 542-06-00
e-mail: drkolodziejczak@o2.pl

Piśmiennictwo

1. Hassan I, Wietfeldt ED: Presacral Tumors: Diagnosis and Management. *Clin Colon Rectal Surg* 2009 May; 22(2): 84-93. 2. García-Armengol J, García-Botello S, Martínez-Soriano F et al.: Review of the anatomic concepts in relation to the retrorectal space and endopelvic fascia: Waldeyer's fascia and the rectosacral fascia. *Colorectal Dis* 2008; 10: 298-302. 3. Glasgow SC, Birnbaum EH, Lowney JK et al.: Retrorectal tumors: a diagnostic and therapeutic challenge. *Dis Colon Rectum* 2005; 48(8): 1581-1587. 4. Buchs N, Taylor S, Roche B: The posterior approach for low retrorectal tumors in adults. *Int J Colorectal Dis* 2007; 22(4): 381-385. 5. Dahan H, Arrivé L, Wendum D et al.: Retrorectal developmental cysts in adults: clinical and radiologic-histopathologic review, differential diagnosis, and treatment. *RadioGraphics* 2001; 21(3): 575-584. 6. Hain KS, Pickhardt PJ, Lubner MG et al.: Presacral Masses: Multimodality Imaging of a Multidisciplinary Space. *RadioGraphics* 2013; 33: 1145-1167. 7. Uhlig BE, Johnson RL: Presacral tumors and cysts in adults. *Dis Colon Rectum* 1975; 18(7): 581-589. 8. Dozois EJ, Jacofsky DJ, Dozois RR: Presacral tumors. [In:] Wolff BG, Fleshman JW, Beck DE et al. (eds.): *The ASCRS Textbook of Colon and Rectal Surgery*. Springer, New York 2007: 501-514. 9. Wolpert A, Beer-Gabel M, Lifschitz O, Zbar AP: The management of presacral masses in the adult. *Tech Coloproctol* 2002; 6(1): 43-49. 10. Lev-Chelouche D, Gutman M, Goldman G et al.: Presacral tumors: a practical classification and treatment of a unique and heterogeneous group of diseases. *Surgery* 2003; 133(5): 473-478. 11. Merchea A, Larson DW, Hubner M et al.: The value of preoperative biopsy in the management of solid presacral tumors. *Dis Colon Rectum* 2013; 56: 756-760. 12. Marinello FG, Targarona EM, Luppi CR et al.: Laparoscopic approach to retrorectal tumors: review of the literature and report of 4 cases. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2011; 21: 10-13.

nadesłano: 02.11.2015
zaakceptowano do druku: 25.11.2015