

ПРЕСАКРАЛЬНАЯ ДЕРМОИДНАЯ КИСТА (КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ)

3.1.9 - Хирургия (медицинские науки)
3.1.25 - Лучевая диагностика
(медицинские науки)

***Степанова Ю.А.¹, Ярош М.В.¹, Магомедрагимова Д.З.¹, Ахтанин Е.А.²**

¹ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр хирургии им. А.В. Вишневского» МЗ РФ

²ГБУЗ г. Москвы «Городская клиническая больница им. С.С. Юдина ДЗМ»

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА:

- пресакральная дермоидная киста
- тератома
- гипоплазия третьей нижней конечности в области правой ягодицы
- диагностика
- лечение
- робот-ассистированное удаление
- орфанные заболевания

АННОТАЦИЯ:

Пресакральные (параректальные) кисты - врожденные аномальные структуры, локализирующиеся в параректальной клетчатке, от простых дермоидных кист до сложных опухолей, содержащих целые органы или их зачатки, т.н. «гистологическое попури», и даже неполные паразитарные плоды. Диагностика пресакральных кист основана на жалобах больного, степени их выраженности, длительности заболевания, анализе результатов клинического и инструментального обследования пациента. Хирургическая резекция является стандартным методом лечения пресакральных кист и опухолей, даже если они бессимптомны, поскольку они могут инфицироваться или, в случае тератом, подвергаться злокачественной дегенерации.

Представляем собственное клиническое наблюдение 19-летней пациентки с диагнозом пресакральная дермоидная киста. Пациентка поступила с жалобами на умеренные боли в нижних отделах живота. Считает себя больной в течении 1 месяца, когда появились вышеописанные жалобы. При амбулаторном обследовании по данным МРТ выявлено кистозное образование малого таза диаметром до 10 см с толстыми стенками, связи с яичниками не выявлено. Из анамнеза в возрасте 10 месяцев было удаление гипоплазированной третьей нижней конечности в области правой ягодицы. Было выполнено робот-ассистированное удаление неорганной забрюшинной опухоли малого таза. Гистологическое заключение: пресакральная дермоидная киста.

Необычность данного наблюдения заключается в молодом возрасте пациентки, а также удаление гипоплазированной третьей нижней конечности в области правой ягодицы в анамнезе. У детей до 18 лет данная опухоль встречается редко. В представленном нами случае, наиболее вероятно, данное образование было врожденным и являлось частью тератомы с гипоплазированной нижней конечностью и было удалено не в полном объеме. С возрастом оно увеличилось в размерах и проявило себя болевыми ощущениями.

Для цитирования. Степанова Ю.А., Ярош М.В., Магомедрагимова Д.З., Ахтанин Е.А. «ПРЕСАКРАЛЬНАЯ ДЕРМОИДНАЯ КИСТА (КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ)». Ж. ДИАГНОСТИЧЕСКАЯ И ИНТЕРВЕНЦИОННАЯ РАДИОЛОГИЯ. 2024; 18(5): 118–124.

*Адрес для корреспонденции (Correspondence to): Степанова Юлия Александровна (Stepanova Yulia A.), e-mail: stepanovaia@mail.ru

PRESACRAL DERMOID CYST (CASE REPORT)

*Stepanova Yu.A.¹, Yarosh M.V.¹, Magomedragimova D.Z.¹, Akhtanin E.A.²

¹A.V. Vishnevsky National Medical Research Center of Surgery

²S.S. Yudin City Clinical Hospital of the Moscow City Health Department

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА:

- presacral dermoid cyst
- teratoma
- hypoplasia of the third lower limb in the area of the right buttock
- diagnosis
- treatment
- robot-assisted removal
- orphan diseases

АННОТАЦИЯ:

Presacral (pararectal) cysts are congenital abnormal structures localized in the pararectal tissue, from simple dermoid cysts to complex tumors containing entire organs or their rudiments, the so-called «histological potpourri», and even incomplete parasitic fruits. Diagnosis of presacral cysts is based on the patient's complaints, the degree of their severity, the duration of the disease, and the analysis of results of clinical and instrumental examination of the patient. Surgical resection is the standard method of treating presacral cysts and tumors, even if they are asymptomatic, since they can become infected or, in the case of teratomas, undergo malignant degeneration.

We present a case report of a 19-year-old woman diagnosed with a presacral dermoid cyst. The patient was admitted with complaints of moderate pain in the lower abdomen. Considers herself ill for 1 month, when the above-described complaints appeared. During an outpatient examination, a cystic lesion in the small pelvis with a diameter of up to 10 cm with thick walls was found according to MRI; no connection with ovaries was found. From the anamnesis at the age of 10 months, there was a removal of hypoplastic third lower limb in the area of the right buttock. Robot-assisted removal of a nonorgan retroperitoneal tumor of the small pelvis was performed. Histology: presacral dermoid cyst.

The unusualness of this case lies in the young age of the patient as well as the removal of a hypoplastic third lower limb in the area of the right buttock in the anamnesis. This tumor is rare in children under 18 years of age. In the presented case, most likely, this lesion was congenital, was part of a teratoma with a hypoplastic lower limb, and was not completely removed. With age, it increased in size and manifested itself as pain.

Введение

Пресакральные (параректальные) кисты - врожденные аномальные структуры, локализующиеся в параректальной клетчатке, от простых дермоидных кист до сложных опухолей, содержащих целые органы или их зачатки, т.н. «гистологическое попури», и даже неполные паразитарные плоды [1-3]. Их истинная частота в общей популяции неизвестна; однако, по оценкам, они составляют около 1 на 40 000 госпитализаций. Средний возраст при диагностике заболевания варьирует в разных исследованиях от 40 до 50 лет, женщины страдают чаще [4].

Пресакральное или ретроректальное пространство ограничено спереди прямой кишкой, сзади - крестцом и копчиком, сверху - брюшиной, снизу - мышцей, поднимающей задний проход, и копчиковой мышцей, а сбоку - мочеточниками и подвздошными сосудами. В этом пространстве может находиться группа редких и неоднородных образований, которые могут быть кистозными или солидными, причем солидные гораздо чаще озлокачествляются. Эти образования становятся симптоматическими из-за их давления на окружающие органы и нервы, у пациентов проявляются неспецифические симптомы, такие как тазовая боль или давление, изменение привычек дефекации, недержание мочи или кала и сексуальная дисфункция. Однако, многие пресакральные образования протекают бессимптомно, их выявляют случайно, либо при плано-

вом осмотре, либо при обследовании по другому поводу [5,6].

Пресакральные дермоидные кисты могут быть одно- или многокамерными, с содержимым, варьирующим от прозрачной жидкости до плотной слизи. Гистологически стенка кисты выстлана более чем одним типом эпителия, который может быть плоским, респираторным или желудочно-кишечным, и состоит из кожных придатков, таких как потовые железы, волосяные фолликулы или сальные кисты в подлежащей строме [6-8]. Диагностика пресакральных кист основана на жалобах больного, степени их выраженности, длительности заболевания, анализе результатов клинического и инструментального обследования пациента [3,9-11]. С помощью ультразвука диагностировать пресакральную дермоидную кисту трудно, поскольку их близость к яичнику может привести к ошибочной диагностике кисты яичника. При подозрении на пресакральное образование следует отдавать предпочтение МСКТ и/или МРТ тазовых органов. МСКТ показывает кисту как пресакральное гиподенсное образование с хорошо отграниченными контурами, тогда как на МРТ содержимое кисты определяет интенсивность МР-сигнала. Определяемая висцеральная инвазия, видимая при визуализации, позволяет заподозрить злокачественные изменения. Предоперационная биопсия для любого пресакрального поражения, которое может быть

хирургически резектабельно, обычно противопоказана из-за риска инфицирования и «засевания» биопсийного тракта злокачественными клетками в случае злокачественной опухоли [8,12-14].

Пресакральные кисты дифференцируют с острым или хроническим парапроктитами, эпителиальным копчиковым ходом, крестцово-копчиковыми хордомами, мезенхимомами, остеомиелитом крестца и копчика, менингоцеле, раком прямой кишки, однако при проведении всего комплекса указанных выше диагностических мероприятий удается достаточно точно установить верный диагноз [15].

Хирургическая резекция является стандартным методом лечения пресакральных кист и опухолей, даже если они бессимптомны, поскольку они могут инфицироваться или, в случае тератом, подвергаться злокачественной дегенерации. Оперативные вмешательства по удалению тератом технически сложны и должны выполняться в специализированных (лучше колопроктологических) стационарах хирургами, имеющими опыт подобных операций. Вид хирургического вмешательства, а также выбор оперативного доступа зависит от величины и локализации пресакральной кисты. Выбор способа завершения оперативного лечения зависит от наличия свищевых ходов и супралеваторного или инфралеваторного расположения внутреннего свищевого отверстия. Современная тактика хирургического лечения направлена на радикальное иссечение кисты вместе со всеми свищевыми ходами, затеками и ликвидацию внутреннего свищевого отверстия. В настоящее время применяются следующие оперативные доступы: парасакральный, промежностный, трансвагинальный, абдоминальный и комбинированный [7,14-17]. Точная диагностическая визуализация имеет важное значение для оценки местоположения и размера этих опухолей и их взаимосвязи с соседними структурами, что помогает определить хирургический подход. Поскольку послеоперационный свищ может

возникнуть в 3% случаев, необходимо подчеркнуть осторожное отсечение образования от прямой кишки [13]. Частота рецидивов доброкачественных пресакральных поражений невелика по сравнению со злокачественными опухолями; однако, она может варьировать в зависимости от способа резекции [6].

Представляем собственное клиническое наблюдение пациентки с диагнозом пресакральная дермоидная киста, которая была удалена робот-ассистированным доступом.

Клиническое наблюдение

Пациентка Ч., 19 лет, поступила с жалобами на умеренные боли в нижних отделах живота.

Анамнез заболевания. Считает себя больной в течении 1 месяца, когда появились вышеописанные жалобы. При амбулаторном обследовании по данным МРТ (консультация диска) - кистозное образование малого таза диаметром до 10 см с толстыми стенками, связи с яичниками не выявлено. Госпитализирована для хирургического лечения.

Анамнез жизни. В возрасте 10 месяцев удаление гипоплазированной третьей нижней конечности в области правой ягодицы (**рис. 1**); три года назад аппендэктомия.

Данные осмотра при поступлении. Состояние удовлетворительное. Кожный покров бледно-розовой окраски, сухой, теплый, чистый. Видимые слизистые без катаральных явлений, нормальной влажности. Подкожная жировая клетчатка: развита умеренно через нос, свободное. Аускультативно дыхание везикулярное, проводится во все отделы, хрипов нет. ЧДД - 14 в мин. Тоны сердца ясные, ритм правильный. Шумов нет. ЧСС = 72 уд. в 1 мин. АД = 120/80 мм рт. ст. Язык влажный, чистый. Живот не вздут, правильной формы, равномерно участвует в акте дыхания. При пальпации живот мягкий, безболезненный во всех отделах. В нижних отделах пальпируется объемное образование



Рис. 1. Внешний вид пациентки с гипоплазированной нижней конечностью в области правой ягодицы (а, б - в разном положении). Иллюстрация предоставлена из архива пациентки.



Рис. 2. МР-томограммы кистозного образования в пресакральном пространстве, T1 В.И.
а - аксиальный срез;
б - сагиттальный срез.

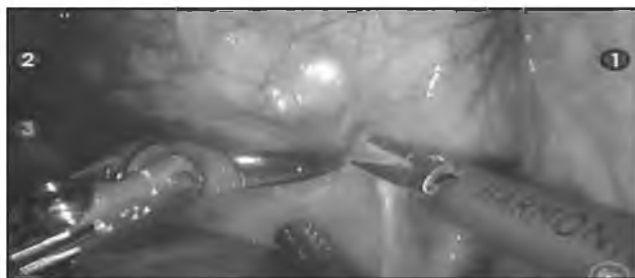


Рис. 3. Интраоперационно, внешний вид образования с роботическими инструментами.

мягко-эластической консистенции. Перитонеальных симптомов нет. Перистальтика выслушивается, газы отходят. Грыжевых выпячиваний не выявлено. Имеется послеоперационный рубец в правой подвздошной области. Область почек визуально не изменена, мочеиспускание не нарушено, дизурии нет. Симптом поколачивания отрицательный с обеих сторон.

Магнитно-резонансная томография органов брюшной полости. В пресакральном пространстве определяется кистозное образование диаметром до 10 см с толстыми несколько неравномерно выраженными стенками, внутренний контур местами неровный, содержимое неоднородное. По правому контуру образования прослеживаются венозные коллатерали, исходящие из системы внутренней подвздошной вены. Связи образования с яичниками не выявлено. Образование оттесняет прямую кишку влево и кпереди, матку кпереди (**рис. 2**).

Показатели общего анализа крови, биохимического анализа крови, коагулограммы, общий анализ мочи в пределах референсных значений.

По данным обследования был поставлен диагноз: Неосложненная однокамерная пресакральная дермоидная киста.

В плановом порядке выполнено оперативное вмешательство: робот-ассистированное удаление неорганической забрюшинной опухоли малого таза. Под эндотрахеальным наркозом пунктирована брюшная полость, наложен пневмоперитонеум 10 мм рт. ст. В брюшной полости свободной жидкости нет. Петли тонкой и толстой кишки без патологии. В малом тазу незначительное количество свободной жидкости. Яичники и маточные трубы несколько гиперемированы, увеличены в размерах. Матка обычных размеров, без особенностей. Установлены три роботических порта и один ассистентский троакар. В брюшную полость введены роботические инструменты (окончатый зажим, биполяр, гармоник). Докинг - 12 мин. В позадиматочном пространстве больше справа в полости малого таза определяется малоподвижная неправильной формы кистозная опухоль с толстыми стенками диаметром до 10 см (**рис. 3**). Слева от опухоли располагается прямая кишка. С помощью гармоника и биполяра выполнена мобилизация опухоли по нижнему и правому контуру «в слое». По правому контуру отмечаются выраженные венозные стволы из системы внутренней подвздошной вены. Выполнена мобилизация опухоли с коагуляцией вен, идущих к опухоли. При выделении нижнего конту-

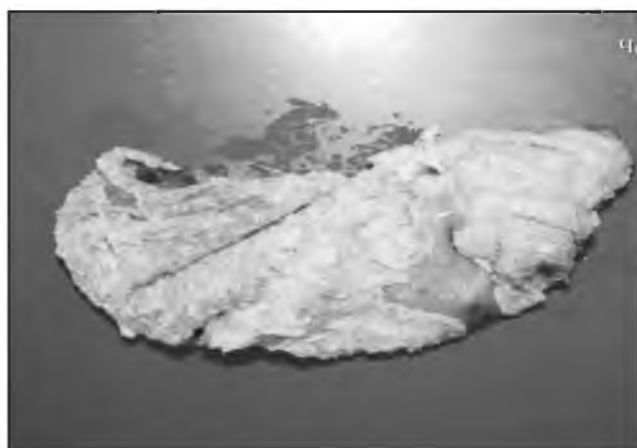
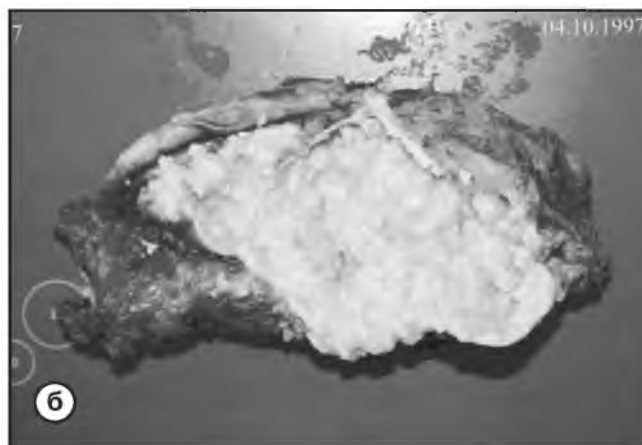
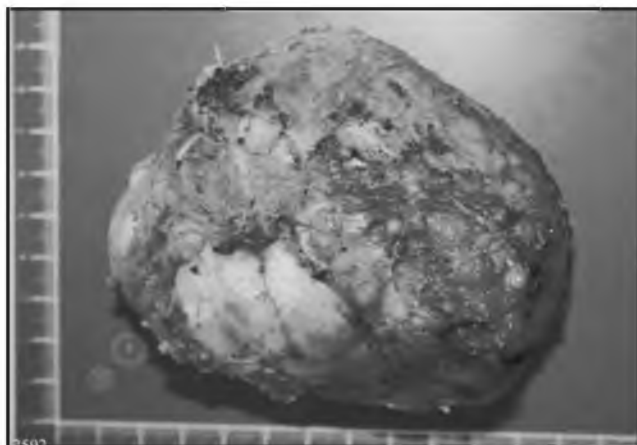


Рис. 4. Внешний вид макропрепарата.
 а - общий вид;
 б - на разрезе;
 в - стенка вывернутого образования;
 г - капсула образования.

ра, последний рыхло фиксирован к крестцу, отделен. Левый контур опухоли отделен от стенки прямой кишки. Выполнено удаление опухоли. Гемостаз. Образование без вскрытия просвета удалено из брюшной полости. Установлен дренаж в полость малого таза. Инструменты и троакары извлечены. Пневмоперитонеум удален. Дренирование полости малого таза. В послеоперационном периоде проводилась анальгетическая терапия. На фоне проводимого лечения осложнений после операции не было. Послеоперационная раны зажили первичным натяжением, дренаж из брюшной полости удален на 2-е сутки после операции.

Гистологическое исследование. Полостное кистозное образование, размерами 9,8×8×5 см. Наружная поверхность серо-розовая, гладкая, с обрывками мелко-дольчатой клетчатки, частично обожженной (рис. 4а). Внутренняя поверхность серого цвета, трабекулярная, покрыта белым хлопьевидным налетом, плотно прилежащем к стенке (рис. 4б,в). Стенка эластичная, толщиной от 0,2 до 0,5 см (рис. 4г).

Заключение. При микроскопическом исследовании стенка кисты представлена ороговевающим многослойным плоским эпителием с наличием в субэпителиальной зоне единичных потовых желез. Принимая во внимание клинические данные, протокол оперативного вмешательства, морфологическая картина пресакральной дермоидной кисты.

Пациентка выписана на 6-е сутки после оперативного вмешательства под амбулаторное наблюдение хирурга по месту жительства.

Необычность данного наблюдения заключается в молодом возрасте пациентки, а также удаление гипоплазированной нижней конечности в области правой ягодицы в анамнезе. Следует отметить, что у детей до 18 лет данная опухоль встречается редко [7]. В представленном нами случае, наиболее вероятно, данное образование было врожденным и являлось частью тератомы с гипоплазированной третьей нижней конечностью и было удалено не в полном объеме. С возрастом оно увеличилось в размерах и проявило себя болевыми ощущениями.

Заключение

Пресакральные дермоидные кисты - редкое доброкачественное образование, выявляемое преимущественно у женщин. Хирургический подход является основным при лечении этих образований, при этом

робот-ассистированный доступ безопаснее и эффективнее, поскольку он уменьшает хирургическую травму и обеспечивает отличную визуализацию глубоких структур в пресакральном пространстве. ■

Список литературы/References

1. Buchs N, Taylor S, Roche B. The posterior approach for low retrorectal tumors in adults. *Int J Colorectal Dis.* 2007; 22(4): 381-385.
<https://doi.org/10.1007/s00384-006-0183-9>
2. Roka YB, Koirala R, Bajracharya A, et al. Giant sacrococcygeal teratoma in an adult: case report. *Br J Neurosurg.* 2009; 23(6): 628-629.
<https://doi.org/10.3109/02688690903114489>
3. Шельгин Ю.А., Благодарный Л.А. Справочник по колопроктологии. - М.: Литтерра, 2012; 596.
Shelygin YuA, Blagodarny LA. Handbook of coloproctology. - M.: Litterra, 2012; 596 [In Russ].
4. Jao SW, Beart RW Jr, Spencer RJ, et al. Retrorectal tumors. Mayo Clinic experience, 1960-1979. *Dis Colon Rectum.* 1985; 28(9): 644-652.
<https://doi.org/10.1007/BF02553440>
5. Hassan I, Wietfeldt ED. Presacral tumors: diagnosis and management. *Clin Colon Rectal Surg.* 2009; 22(2): 84-93.
<https://doi.org/10.1055/s-0029-1223839>
6. Reiter MJ, Schwoppe RB, Bui-Mansfield LT, et al. Surgical management of retrorectal lesions: what the radiologist needs to know. *Am J Roentgenol.* 2015; 204(2): 386-395.
<https://doi.org/10.2214/AJR.14.12791>
7. Jones M, Khosa J. Presacral tumours: a rare case of a dermoid cyst in a paediatric patient. *BMJ Case Rep.* 2013; 2013: bcr2013008783.
<https://doi.org/10.1136/bcr-2013-008783>
8. Brown IS, Sokolova A, Rosty C, Graham RP. Cystic lesions of the retrorectal space. *Histopathology.* 2023; 82(2): 232-241.
<https://doi.org/10.1111/his.14769>
9. Isaacs H Jr. Congenital and neonatal malignant tumors. A 28-year experience at Children's Hospital of Los Angeles. *Am J Pediatr Hematol Oncol.* 1987; 9(2): 121-129.
10. Wolpert A, Beer-Gabel M, Lifschitz O, Zbar AP. The management of presacral masses in the adult. *Tech Coloproctol.* 2002; 6(1): 43-49.
<https://doi.org/10.1007/s101510200008>
11. Bebobru M, Nasri FA, Niculescu-Valaenu M, Friedhoff K. Retrorectal teratoma (dermoid cyst) of an adult - Diagnosis and treatment based on an example of a case report. *Dtsch Med Wochenschr.* 2021; 146(2): 104-107.
<https://doi.org/10.1055/a-1265-8649>
12. Glasgow SC, Birnbaum EH, Lowney JK, et al. Retrorectal tumors: a diagnostic and therapeutic challenge. *Dis Colon Rectum.* 2005; 48(8): 1581-1587.
<https://doi.org/10.1007/s10350-005-0048-2>
13. Coco C, Manno A, Mattana C, et al. Congenital tumors of the retrorectal space in the adult: report of two cases and review of the literature. *Tumori.* 2008; 94(4): 602-607.
<https://doi.org/10.1177/030089160809400428>
14. Zhou JL, Wu B, Xiao Y, et al. A laparoscopic approach to benign retrorectal tumors. *Tech Coloproctol.* 2014; 18(9): 825-833.
<https://doi.org/10.1007/s10151-014-1146-8>
15. Клинические рекомендации по диагностике и лечению пресакральных кист у взрослых пациентов. Рекомендации разработаны экспертной группой Общероссийской Общественной Организации «Ассоциация колопроктологов России». - М.: 2013.
Clinical guidelines for the diagnosis and treatment of presacral cysts in adult patients. The guidelines were developed by the expert group of the All-Russian Public Organization «Association of Proctologists of Russia». - M.: 2013 [In Russ].
http://xn----9sdbdbei7bduahou3a5d.xn--p1ai/upload/recommendation_kyst.pdf
16. Nair RR, Shoukrey MN, Whitlow B. Presacral dermoid: now you see it now you don't. *Gynecol Surg.* 2007; 4(3): 229-231.
<https://doi.org/10.1007/s10397-007-0278-5>
17. Duclos J, Maggiori L, Zappa M, et al. Laparoscopic resection of retrorectal tumors: a feasibility study in 12 consecutive patients. *Surg Endosc.* 2014; 28(4): 1223-1229.
<https://doi.org/10.1007/s00464-013-3312-x>

ИНФОРМАЦИЯ ОБ АВТОРАХ:

СТЕПАНОВА ЮЛИЯ АЛЕКСАНДРОВНА - [ORCID: 0000-0002-2348-4963]

д.м.н., профессор, врач ультразвуковой диагностики, Ученый секретарь,
ФГБУ «НМИЦ хирургии им. А.В. Вишневского» МЗ РФ,

117997 Российская Федерация, г. Москва, ул. Большая Серпуховская, 27;

ЯРОШ МАРК ВАДИМОВИЧ - [ORCID: 0009-0005-7502-268X]

ординатор отделения ультразвуковой диагностики,
ФГБУ «НМИЦ хирургии им. А.В. Вишневского» МЗ РФ,

117997 Российская Федерация, г. Москва, ул. Большая Серпуховская, 27;

МАГОМЕДРАГИМОВА ДИАНА ЗАВИРОВНА - [ORCID: 0009-0009-2126-4383]

ординатор отделения ультразвуковой диагностики,
ФГБУ «НМИЦ хирургии им. А.В. Вишневского» МЗ РФ,

117997 Российская Федерация, г. Москва, ул. Большая Серпуховская, 27;

АХТАНИН ЕВГЕНИЙ АЛЕКСАНДРОВИЧ - [ORCID: 0000-0002-1543-6419]

к.м.н., заведующий 1-м хирургическим отделением,
ГБУЗ г. Москвы «Городская клиническая больница им. С.С. Юдина
Департамента здравоохранения города Москвы»,

115446 Российская Федерация, г. Москва, Коломенский проезд, 4.

Конфликт интересов, информация о клинической базе и финансировании

Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов. Исследование проведено без спонсорской поддержки. Соблюдение прав пациентов и правил биоэтики. Все пациенты подписали информированное согласие на участие в исследовании. Работа выполнена на базе ФГБУ «НМИЦ хирургии им. А.В. Вишневского» МЗ РФ.