

Retrorektal Epidermal Kist: Dört Olgunun Sunumu ve Literatürün Gözden Geçirilmesi

Olca Alver¹, Melih Paksoy¹, Bilgi Baca¹, İlknur Erenler², Bayram Kayabaşı¹,
Fadıl Ayan¹, Sergülen Dervişoğlu³

¹İstanbul Üniversitesi Cerrahpaşa Tıp Fakültesi Genel Cerrahi Anabilim Dalı, İstanbul

²Genel Cerrahi Uzmanı, Kocaeli

³İstanbul Üniversitesi Cerrahpaşa Tıp Fakültesi Patoloji Anabilim Dalı, İstanbul

Özet

Amaç: Retrorektal bölgede görülen lezyonlar nadir ve embriyolojik kökenlidir. Retrorektal kistler bu lezyonlardan biridir. Bu çalışmada retrorektal kisti olan dört olguyu sunduk ve literatürü gözden geçirdik.

Yöntem: Çalışmaya retrorektal kist nedeni ile ameliyat edilen hastalar dahil edildi. Tıbbi müşahedeler, rektal muayene, rektoskopi, endorektal ultrasonografi, bilgisayarlı tomografi, magnetik rezonans görüntüleme, hispatolojik sonuçlar retrospektif olarak değerlendirildi.

Bulgular: Retrorektal kist nedeni ile dört bayan hasta ameliyat edildi. Hastaların hepsinde rektumda doluluk hissi, tenesmus, ve dispareni mevcuttu. Hepsi posterior yaklaşımla tedavi edildi. Ameliyat sonrası hastanede kalış süresi ortalama 7 (6-8) gün, ortalama takip süresi 7 (3-13) yıldır. Histopatolojik sonuçlar epidermal kist ile uyumlu idi. Hastaların hepsi sorunsuz taburcu edildi ve uzun dönem takiplerinde nüks rastlanmadı.

Sonuç: Retrorektal epidermoid kistlerin tanı ve cerrahi tedavi planlamasında birçok görüntüleme yöntemi kullanılmaktadır. Selim olan bu lezyonların cerrahi olarak tamamen çıkarılmasını öneriyoruz.

Anahtar kelimeler: Retrorektal kist, epidermal kist, retrorektal tümör

Cerrahpaşa Tıp Derg 2009; 40: 97-102

Retrorectal epidermal cyst: report of four cases and review of the literature

Abstract

Objectives: Lesions occurring in the retrorectal space are rare and are derived from a variety of embryologic origins. Retrorectal cysts are one of the groups of these lesions. In this study, we presented four patients who had developmental retrorectal cysts and we also reviewed the literature.

Methods: Patients who underwent surgical intervention for retrorectal cysts were included in this study. Medical records, results of digital and proctoscopic examination, endorectal ultrasonography, computerized tomography, magnetic resonance imaging and histopathological reports were reviewed retrospectively.

Results: Four female patients underwent surgical resection of their retrorectal cysts. All of them were complaining of sense of fullness in the rectum, tenesmus, and dyspareunia. The posterior perineal route was used in all four patients. Mean postoperative stay was 7 (6-8) days. Mean follow-up time was 7 (3-13) years. Histopathological examination of resected specimens revealed epidermal cyst. All patients were discharged without any problem and during long term follow up, no recurrence or discomfort was encountered.

Conclusion: Various imaging modalities have been used for the diagnosis and surgical treatment planning of retrorectal epidermoid cysts. We recommend complete surgical resection of these benign lesions.

Key words: Retrorectal cyst, epidermal cyst, retrorectal tumor

Cerrahpaşa J Med 2009; 40: 97-102

Alındığı Tarih: 16 Temmuz 2009

Yazışma Adresi (Address): Dr. Melih Paksoy

İ.Ü. Cerrahpaşa Tıp Fakültesi Genel Cerrahi Anabilim Dalı

Cerrahpaşa - İstanbul

e-posta: smpaksoy@yahoo.com

Retrorektal alan önde fasya propria rekti, arkada ve üstte Waldeyer'in retrorektal fasyası ile sınırlıdır. Bu bölgede bir takım notokordal, klokal ve nörojenik kökenli tümörler gelişebilir [1-3].

Retrorektal kistlerin (RRK) birçoğu embriyolojik kalıntılardan gelişmektedir. Tek tabakalı germ hücrelerinden kaynaklanan histolojik elementler içeren RRK'ler gelişimsel kistler olarak sınıflandırılır. Gelişimsel kistlerden dermoid kistler, deri uzantılı skuamöz epitel içerirken epidermal kistlerde deri uzantıları yoktur [1,4-6] Erişkinlerde ki retrorektal kistlerin birçoğu selim olmasına rağmen büyüdükçe enfekte olabilirler. Ayrıca şişlik oluşturarak pelvik yapıların yer değiştirmesine ve böylece bası semptomlarına yol açarlar [2,7-9].

RRK'lerin malign transformasyonu nadir görülür. Bazen aylarca veya yıllarca ihmal edilen tekrarlayan enfeksiyonlara neden olurlar [2,5,7,10,11].

Bu çalışmada retrorektal kaynaklı epidermal kisti olan olguların sonuçları sunularak literatür gözden geçirildi.

Gereç ve Yöntem

Bu çalışmaya retrorektal kist nedeni ile cerrahi rezeksiyon yapılan dört kadın hasta dahil edildi. Tanı, anamnez, rektal muayene ve rektosigmoidoskopik inceleme, endorektal ultrasonografi (ERUS), bilgisayarlı tomografi (BT) ve magnetik rezonans görüntüleme (MR) ile kondu. Hastaneye başvuru şikayetleri, muayene bulguları, tanı yöntemleri, ameliyat bulguları ve sonuçları değerlendirildi.

Hastalara genel anestezi altında cerrahi işlem uygulandı. Hastaların ikisine litotomi pozisyonunda, diğerlerine de prone Jack- Knife pozisyonunda posterior perineal yol ile retrorektal kistler çıkarıldı. Posterior yaklaşımda retrorektal alana girmek için anal kanala doğru posterior parakoksigeal insizyon yapıldı (Şekil 1). Kistler keskin disseksiyonla en-blok şeklinde tamamen çıkarılarak histopatolojik inceleme için patoloji laboratuvarına gönderildi.

Bulgular

Hastaların ortalama yaşı 35 yıl (23-51) olup hepsi kadındı. Hastaların hepsi rektumda doluluk hissi, tenesmus ve disparoni şikayeti ile başvurular. Rektal tuşe ve rekosigmoidoskopik incelemede değişen büyüklüklerde retrorektal kitle mevcuttu (Tablo 1). Endorektal ultrasonda iki hastada retrorektal alanda hipoeoik, iyi sınırlı kitle tespit edildi. Pelvik BT yapılan üç hastada retrorektal alanda sınırları düzgün homojen karakterde sıvı içeren kapsüllü perirektal apse olduğu düşünülen kistik lezyon görüntüledi. Bir hastada MR görüntülemesinde koksikse doğru duplikasyon kisti olduğu düşünülen hafif yoğun sıvı içerikli bilobe 3,5 x 2,5 x 2,5 cm boyutlarında kistik lezyonun apseye bağlı olduğu anlaşıldı. Sadece bu hastada ameliyat lojuna bir adet hemovak dren yerleştirildi ve ameliyat sonrası 3. gün alındı.



Şekil 1. Parakoksigeal posterior yaklaşımla retrorektal tümörün ekspozisyonu.



Şekil 2. Epidermal inklüzyon kistinin mikroskopik görünümü.

Tablo 1. Retrorektal kist nedeni ile cerrahi rezeksiyon yapılan hastaların bulguları.

Cins ve yaş	Semptomlar	Rektal muayene ve sigmoidoskopik inceleme	Görüntüleme	Rezeksiyon	Hastanede kalış süresi (gün)
Kadın 35	Doluluk hissi Tenesmus Disparoni	Retrorektal yerleşimli anal verge'den 10 cm uzaklıkta oval yapıda kistik kitle	ERUS; 8x8x5 cm'lik hipodens düzgün sınırlı kistik kitle BT: 8x7x4 cm boyutlarında rektum arkasında yerleşimli pelvik hipodens lezyon	Prone Jack-knife pozisyonunda posterior rezeksiyon	8
Kadın 51	Doluluk hissi Tenesmus Disparoni	Anal verge'den 4 cm uzaklıkta, 3 cm çapında düzgün yüzeyli, ağrısız mobil kistik kitle	BT: 3x3x4 cm hipodens anal kanal arkasında düzgün sınırlı lezyon	Litotomi pozisyonunda posterior rezeksiyon	6
Kadın 23	Doluluk hissi Tenesmus Disparoni	Anal verge'den 2 cm uzaklıkta, yaklaşık 8 cm uzunluğunda ve 4 cm çapında oval, düzgün yüzeyli retrorektal kitle	ERUS: İyi sınırlı hipoekojen 8x6x4 cm kitle	Litotomi pozisyonunda posterior Litotomi	7
Kadın 34	Dolgunluk hissi Tenesmus Disparoni Perianal ağrı Ağrılı defekasyon	Anal verge'den 4 cm uzaklıkta herhangi bir mukozal hastalık bulgusu vermeyen posterior duvarda lokalize ektramural kitle	BT: 5x3x2 cm boyutunda retrorektal alanda lokalize düzgün sınırlı kistik lezyon MRI: 3,5x 2,5 x2,5 cm boyutunda bilobule yapıda hafif yoğun içerikli lezyon	Prone Jack-knife pozisyonunda apse drenajı sonrası posterior rezeksiyon	8

Makroskopik olarak bütün kistler oval, düzgün yüzeyli, iyi sınırlı ve elastik yapıdaydı. Mikroskopik incelemede düzgün dış yüzeyli sarımsı beyaz renkte granüller içerikli çoğunlukla kistik yapı içeren görünüm tespit edildi. Kist duvarı tüm hastalarda epidermal inklüzyon kisti ile uyumlu idi (Şekil 2). Ortalama hastanede kalış süresi 7 (6-8) gündü. Ortalama takip süresi 7 (3-13) yıldır. Takip süresince hiçbir hastada nüks veya komplikasyon gelişmedi.

Tartışma

Retrorektal tümörler (RR) nadir görülen tümörler olup hastaneye başvuran her 40.000 kişiden 1'inde, ve kliniklerde rektosigmoidoskopik inceleme yapılan hastaların yüzde 0.02'sinde görülmektedir [2,4,6]. Retrorektal tümörler genellikle konjenital, inflamatuvar, nörojenik, osseos, ve karışık olarak sınıflandırılırlar. Epidermal, dermoid, tailgut, mukus salgılayan kistler, enterik duplikasyonlar, nöroenterik kistler, ve kistik teratomları içeren gelişimsel kistler retrorektal kistik neoplazmlar arasında en sık görülen subgruptur [2,4-11].

Retrorektal epidermal kistler ektodermal orijinli nadir görülen konjenital lezyonlardır. Epidermal/dermoid kist oranı yetişkin RR tümörleri arasında 12.5/17.5 dur. Üreme çağında ki kadınlarda daha sık iken erkeklerde daha az görülür [1,4,5,12-16].

Retrorektal epidermal kistler derinin selim inklüzyon kistleri olup bir çoğu sferik veya oval yapıları unilokuler lezyonlardır ve çoğunlukla duvarları çok katlı squamöz epitel ile kaplıdır fakat ter bezleri ve kıl folikülleri gibi deri eklentileri yoktur [1,4,5,10].

RRK'lerin klinik belirtileri boyutuna, lokalizasyonuna ve enfeksiyon veya malignitenin varlığına bağlı olarak değişir. RRK'lerin %50-60'ı asemptomatiktir ve rutin taramalarda tesadüfen saptanır [2,3,7,8,16,17]. Başvuru anındaki en sık görülen semptom kötü lokalize edilen, pelvik, lomber ağrı veya uzun süreli belli belirsiz rektal rahatsızlıktır. Ağrı oturma veya çömelme ile agra ve olurken ayağa kalkma veya yürüme ile rahatlar [3,8,17] Eğer kist komşu rektuma lokal bası yapacak kadar büyük ise hastalar konstipasyon, rektal doluluk, tenesmus ve ağırlı defekasyondan şikayet edebilir. Bizim hastalarımızın da tümü bu şikayetler ile başvurdu. Mesane

boynuna lokal kompresyon dizürü, sık idrara çıkma, ve tekrarlayan üriner sistem enfeksiyonuna neden olabilir [7-9]. RRK rektuma ve vajina forniksine yakın olmasından dolayı kitle etkisine bağlı hastalar dispareni veya rektumda baskı hissedebilir [9,18].

Özellikle epidermal ve enterik kistlerle ilişkili olarak %30-50 oranında kronik enfeksiyon görülebilir. Enfeksiyon lokal abse veya anorektal fistül olarak ortaya çıkabilir [7,19,20] Nadiren, gelişimsel RRK'ler anorektal malformasyon ve sakral kemik defekti ile ilişkili hereditör Currarino sendromunun bir bileşeni olabilir [7,21].

RRKler rektumun arka duvarında düzgün yüzeyli, iyi sınırlı, sıkı veya gergin elastik yapıda palpe edilirken, bazen kötü sınırlı olarak rektal lumenden palpe edilebilirler. Kitlenin üzerinde düzgün mobil rektal mukoza yoksa geçirilmiş enfeksiyon veya nadiren maligniteyi gösterir [7] Uzun dönemde tekrarlayan RRK enfeksiyonları skuamöz karsinom ile ilişkili olabilir [13]. Erişkinlerde kistik lezyonlar için malignite riski %10 kadardır [22].

Rektal tuşe hemen tüm hastalarda RRK belirlemenin en etkili ve en ucuz yoludur [2,4,5,7]. Baryum enema kist ve anorektal lumen arasındaki ilişkiyi gösterir. Sinografi veya fistülografi sinus veya fistül traktı ile kist arasındaki ilişkiyi gösterebilir [7,8,12,15,23] Rektosigmoidoskopi RRK'li tüm olgulara mukozal anormalliklere yol açan durumları dışlamak için yapılmalıdır [8,12] Preoperatif ERUS ve MR, peritümoral planları, özellikle muskularis propriada tutulum olup olmadığını görmek ve buna göre seçilecek tedaviyi belirlemek için yardımcı olur [2,8]

Bizim serimizde ki hastaların üçünde BT tanıyı koyma ve doğrulamada ki en iyi tanısal yöntemdi. RRK'lere genellikle BT veya US eşliğinde ince iğne aspirasyon biyopsisi bir takım teorik riskler yüzünden uygun değildir. Bu riskler şunlardır: 1) Malignite mevcut ise sağlıklı dokulara yayılmasına neden olabilir; 2) Ciddi enfeksiyona neden olabilir; 3) Orta sakral arteri hasarlayarak kanamaya yol açabilir, 4) Anokoksigial ligamanı hasarlayabilir; 5) Sempatik gangliyonları hasarlayarak nöraljiye neden olabilir [2,5].

Serilerde tedavi edilmiş RRK'li hastaların %80'inin fazlasında koksiksektomiyle birlikte veya koksiksektomisz posterior yaklaşım önerilmektedir [4,10,13-

16,23-31]. Özellikle de S3'ün altında lokalize, 4.5 cm'ye kadar olan infekte kistler için en uygun yöntemdir. 4.5 cm den büyük veya S3'ün üzerinde yerleşimli veya malign dejenerasyona eğilimli retrorektal kistler abdominal veya kombine abdominosakral yaklaşım gerektirir. Bu yaklaşım güvenli vasküler kontrol, sakral sinirlerin iyi ekspozisyonuna, kistin proksimal ve distalinin kolayca diseksiyonuna izin verir [1-3,5,8,10,26-30,32,33]. Günümüzde artık kombine laparoskopik ve perineal yaklaşımla da retrorektal kistler eksize edilebilmektedir [20]. Transrektal yaklaşım ise küçük, mobil aşağı yerleşimli, düşük morbidite ve minimal nüks oranı olan seçilmiş hastalarda kullanılabilir [2,12].

Şiddetli disparoni şikayeti olan genç kadın hastalarda RRK olasılığı düşünülmelidir. Literatürde epidermal kist dermoid kistten daha çok bildirilmiştir [4,8,12,13,25,30].

Semptomların düzelmesi, patolojik tanının konması ve sonrasında gelişebilecek enfeksiyon ve malign dejenerasyonun engellenmesi için RRKleri tamamen çıkarılması başlıca tedavi şeklidir. Birçok aşağı yerleşimli RRK'lerde kistin tamamen çıkarılması posterior yaklaşımla güvenli ve etkili bir şekilde yapılabilir.

Kaynaklar

- Hannon J, Subramony C, Scott-Conner CE. Benign retrorectal tumors in adults: the choice of operative approach. *Am Surg* 1994; 60: 267-272.
- Wolpert A, Beer-Gabel M, Lifschitz O, Zbar AP. The management of presacral masses in the adult. *Tech Coloproctol* 2002; 6: 43-49.
- Young-Fadok TM, Dozois, RR. Retrorectal tumors. In: Zuidema GD, Yeo, C. J. ed. *Shackelford's Surgery of the Alimentary Tract*. 5th ed. Philadelphia: WB Saunders Co.; 2002. p. 471-479.
- Jao SW, Beart RW, Jr., Spencer RJ, Reiman HM, Ilstrup DM. Retrorectal tumors. Mayo Clinic experience, 1960-1979. *Dis Colon Rectum* 1985; 28: 644-652.
- Ueda K, Tsunoda A, Nakamura A, et al. Presacral epidermoid cyst: report of a case. *Surg Today* 1998; 28: 665-668.
- Kendi ATK, Kendi M, Agildere M, Yilmaz S. MR Imaging findings of a large epiermal cyst. *Eur J Radiol Extra* 2005; 53: 7-9.
- Dahan H, Arrive L, Wendum D, Docou le Pointe H, Djouhri H, Tubiana JM. Retrorectal developmental cysts in adults: clinical and radiologic-histopathologic review, differential diagnosis, and treatment. *Radiographics* 2001; 21: 575-584.
- Singer MA, Cintron JR, Martz JE, Schoetz DJ, Abcarian H. Retrorectal cyst: a rare tumor frequently misdiagnosed. *J Am Coll Surg* 2003; 196: 880-886.
- Singh SJ, Rao P, Stockton V, Resurreccion L, 3rd, Cummins G. Familial presacral masses: Screening pitfalls. *J Pediatr Surg* 2001; 36: 1841-1844.
- Bohm B, Milsom JW, Fazio VW, Lavery IC, Church JM, Oakley JR. Our approach to the management of congenital presacral tumors in adults. *Int J Colorectal Dis* 1993; 8: 134-138.
- Kang JC, Kaiser AM, Tolazzi AR, Vukasin P, Ortega AE, Beart RW, Jr. Presacral cysts- a risk for malignancy. *Contemp Surg* 2002; 58: 448-452.
- Pidala MJ, Eisenstat TE, Rubin RJ, Salvati EP. Presacral cysts: transrectal excision in select patients. *Am Surg* 1999; 65: 112-115.
- Spencer RJ, Jackman RJ. Surgical management of precoccygeal cysts. *Surg Gynecol Obstet* 1962; 115: 449-452.
- Stewart RJ, Humphreys WG, Parks TG. The presentation and management of presacral tumours. *Br J Surg* 1986; 73: 153-155.
- Uhligh BE, Johnson RL. Presacral tumors and cysts in adults. *Dis Colon Rectum* 1975; 18: 581-189.
- Whittaker LD, Pemberton JD. Tumors ventral to the sacrum. *Ann Surg* 1938; 107: 96-106.
- Malafosse M, Gallot D, Douvin D, Herve de Sigalony JP. [Peri-ano-rectal cysts and tumours of vestigial origin in the adult (author's transl)]. *J Chir (Paris)* 1977; 113: 351-360.
- Heim LJ. Evaluation and differential diagnosis of dyspareunia. *Am Fam Physician* 2001; 63: 1535-1344.
- Yang DM, Yoon MH, Kim HS, Oh YH, Ha SY, Oh JH, Chung HS. Presacral epidermoid cyst: imaging findings with histopathologic correlation. *Abdom Imaging* 2001; 26: 79-782.
- Palanivelu C, Rangarajan M, Senthilkumar R, Madankumar MV, Annapoorni S. Laparoscopic and perineal excision of an infected "dumb-bell" shaped retrorectal epidermoid cyst. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2008; 18: 88-92.

21. Lee RA, Symmonds RE. Presacral tumors in the female: clinical presentation, surgical management, and results. *Obstet Gynecol* 1988; 71: 216-221.
22. Campbell WL, Wolff M. Retrorectal cysts of developmental origin. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 1973; 117: 307-313.
23. Abel ME, Nelson R, Prasad ML, Pearl RK, Orsay CP, Abcarian H. Parasacroccygeal approach for the resection of retrorectal developmental cysts. *Dis Colon Rectum* 1985; 28: 855-858.
24. Nishie A, Yoshimitsu K, Honda H, et al. Presacral dermoid cyst with scanty fat component: usefulness of chemical shift and diffusion-weighted MR imaging. *Comput Med Imaging Graph* 2003;27: 293-296.
25. Wang JY, Hsu CH, Changchien CR, et al. Presacral tumor: a review of forty-five cases. *Am Surg* 1995; 61: 310-315.
26. Burchell MC. Radiologic impact on operative access to a retrorectal cyst. *Dis Colon Rectum* 1987; 30: 396-397.
27. Glasgow SC, Birnbaum EH, Lowney JK, et al. Retrorectal tumors: a diagnostic and therapeutic challenge. *Dis Colon Rectum* 2005; 48: 1581-1587.
28. Guillem P, Ernst O, Herjean M, Triboulet JP. [Retrorectal tumors: an assessment of the abdominal approach]. *Ann Chir* 2001;126: 138-42.
29. 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: 473-478.
30. MacCarty CS, Waugh JM, Coventry MB, Cope WF, Jr. Surgical treatment of sacral and presacral tumors other than sacroccygeal chordoma. *J Neurosurg* 1965; 22: 458-464.
31. Menten BB, Kurukahvecioglu O, Ege B, ve ark. Retrorectal tumors: a case series. *Turk J Gastroenterol* 2008; 19: 40-44.
32. Erden A, Ustuner E, Erden I, Kuzu MA, Heper AO. Retrorectal dermoid cyst in a male adult: case report. *Abdom Imaging* 2003; 28: 725-227.
33. Zileli M, Hoscoskun C, Brastianos P, Sabah D. Surgical treatment of primary sacral tumors: complications associated with sacrectomy. *Neurosurg Focus* 2003; 15: E9.