

—症例報告—

小児の足趾に生じた皮膚瘻孔の1例

初岡 佑一 小野 真平 大井 一輝 小川 令

日本医科大学付属病院形成外科・再建外科・美容外科

A Case of Cutaneous Fistula in a Child's Toe

Yuichi Hatsuoka, Shimpei Ono, Kazuki Oi and Rei Ogawa

Department of Plastic, Reconstructive and Aesthetic Surgery, Nippon Medical School Hospital

Abstract

We report a case of a cutaneous fistula in a child's toe, along with a review of the literature. The patient was a 5-year-old boy whose mother noticed a depressed region at the base of the right first toe when he was 2 years old. The depression persisted with time, so he was referred to our department. During the initial visit, a cutaneous fistula with a diameter of 1 mm and a depth of 2 mm was observed at the base of the toe. Surgical excision was performed, and histopathological findings demonstrated that the fistula wall consisted of multilayered squamous epithelium with a prominent stratum corneum. Postoperative follow-up showed no recurrence. Cutaneous fistulas can be categorized as congenital or acquired. Congenital ear fistulas are caused by a failure of fusion of the auricular tubercle or remnants of the first branchial cleft during the development of the ear. No congenital cutaneous fistulas have been identified arising solely in the limbs. With regard to acquired fistulas, pilonidal sinus has been reported, as have underlying infections and foreign bodies, but none of these were present in our patient. Pilonidal sinuses can form fistulas, cysts, or granulomas containing hair; they occur predominantly in the sacral region, but rarely in the interdigital area. Eight cases have been reported between the fingers, and three between the toes since 2000, mostly in patients working in hair-related occupations, such as barbers, hairdressers, dog trimmers, and sheep shearers. Hair and wool have been identified within the fistulas in the lesions of those working in these occupations. With interdigital sinuses, it is believed that hair clippings penetrate the skin, causing foreign body reactions that result in fistulas which then spread as the hair repeatedly penetrates the fistulas via abrasions of the surrounding skin. In our patient, neither the affected child nor his family had a history of hair exposure or pet ownership. However, considering the lack of previous reports of congenital cutaneous fistulas of the toes and the unlikelihood of a cutaneous fistula developing naturally in such an anatomical site, we thought the probability of an acquired interdigital pilonidal sinus was high. Cutaneous fistulas occurring in the toes are rarely reported in the literature, and reports of more cases will be necessary to elucidate the pathogenesis of this disease.

(日本医科大学医学会雑誌 2023; 19: 339-342)

Key words: child, cutaneous fistula, pilonidal sinus, dermal pit, toe

Correspondence to Yuichi Hatsuoka, Department of Plastic, Reconstructive and Aesthetic Surgery, Nippon Medical School Hospital, 1-1-5 Sendagi, Bunkyo-ku, Tokyo 113-8603, Japan

E-mail: y-hatsuoka@nms.ac.jp

Journal Website (<https://www.nms.ac.jp/sh/jmanms/>)

緒言

皮膚瘻孔は、皮膚に開口した管状の欠損のことであり、体表で盲端に終わるものもあれば、深部臓器と交通するものもある。皮膚瘻孔の原因は、先天性、炎症、外傷、医源性、異物、など多岐にわたる。皮膚瘻孔として頻度の高いのは、先天性耳瘻孔（胎生期の耳介形成不全による先天体表奇形であり、耳介および耳介周囲に皮膚瘻孔が生じる）や臀部毛巣洞（多毛で長時間の座位を習慣にする人の仙骨部正中に毛髪を含む皮膚瘻孔が生じる）が挙げられる。両疾患とも皮膚瘻孔の



図1 Findings at first visit
右第1趾基部に直径1 mm、深さ2 mmの瘻孔を認める

みでは無症状だが、細菌感染により炎症を繰り返すことがある。また、いずれも主な発生部位が存在するが手指や足趾に生じることはまれである。今回われわれは、小児の右第1趾に生じた皮膚瘻孔の一例を経験したため、文献的考察を加えて報告する。

症例

患者：5歳、男児

主訴：右第1趾の皮膚瘻孔

現病歴：患児が2歳頃に母親が右第1趾基部の皮膚陥凹に気づいたが、症状がないため様子をみていた。5歳になっても皮膚陥凹が消失しないため、当科を受診した。過去に炎症歴は認めていない。

初診時所見：右第1趾基部外側に皮膚瘻孔を認め、皮膚開口部の直径は1 mm、外科ゾンデを挿入すると深さは2 mmであり深部は盲端に終わっていた。皮膚瘻孔が深部と交通するような慢性骨髄炎、感染症（結核、放線菌症など）、異物残留を否定する目的でCTを撮影した。CTで炎症所見は明らかでなく、瘻孔の深部端は皮膚浅層にとどまっていた（図1）。

既往歴・家族歴：特記事項なし。患児には毛髪の曝露歴やペットの飼育歴はなく、両親も毛髪や動物に関連する職業歴はない。

手術所見：全身麻酔下に皮膚瘻孔の摘出術を施行した。手術は皮膚瘻孔を中心にした紡錘形の皮膚切開を

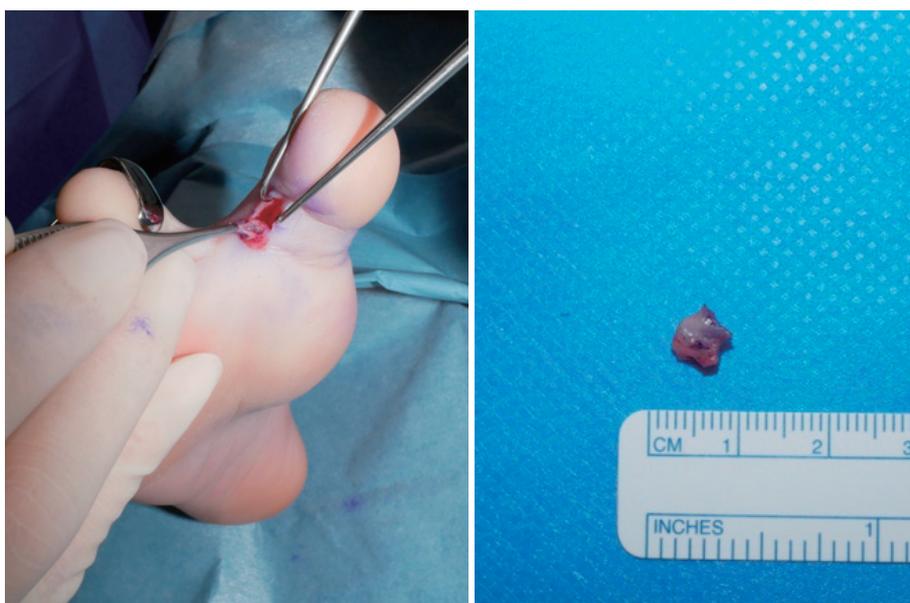


図2 Left: Intraoperative photograph Right: Excised fistula
摘出した瘻孔の内部に毛髪や異物なし

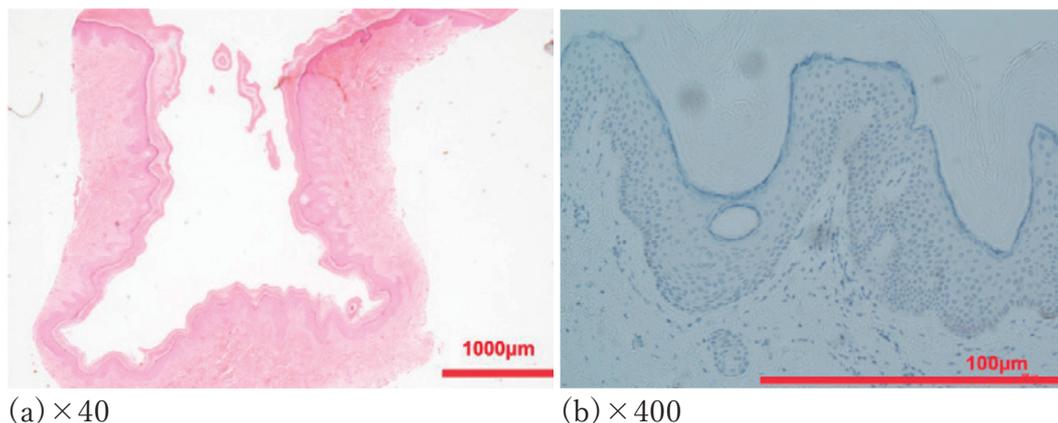


図3 Histopathological findings
 (a) HE staining (×40)：瘻孔壁は重層扁平上皮であり，角化層が目立つ
 (b) HPV staining negative (×400)：HPV 関連皮様嚢腫は否定的

表1

Pilonidal sinus between fingers						
報告年	年齢	性別	部位	職業	治療	病理
2021	29	男	両側第2指間	理髪	手術	線維膠原増加，炎症細胞を含む肉芽組織，管腔は毛包のない扁平上皮
2016	24	男	右第2指間	トリマー	手術	周囲の線維，ヘモジデリンを伴う嚢胞性濾胞
2013	24	女	左第4指間	トリマー	手術	扁平上皮で囲まれた角化物質と多数の毛幹
2011	31	男	左第3指間	羊農家	手術	炎症を伴う瘻孔構造と多種類の羊毛
2010	45	女	右第3指間	理髪	手術	炎症細胞を含む扁平上皮
2008	29	女	右第3指間，手掌	理髪	手術	複数の毛髪と肉芽腫を伴う上皮で裏打ちされた瘻孔
2006	57	男	右第2指間	理髪	手術	記載なし
2003	48	男	右第3指間	理髪	手術	ケラチンと扁平上皮に囲まれた，炎症細胞を含む瘻孔

Pilonidal sinus between toes						
報告年	年齢	性別	部位	職業	治療	病理
2019	23	女	左第4足趾間	理髪	手術希望なし	なし
2009	44	女	左第4足趾間	理髪	手術	毛幹を伴う毛巢洞
2006	48	女	左第4足趾間	理髪	毛髪除去のみ	なし

し，瘻管に沿って周囲組織から剝離して皮膚全層で摘出した。皮膚瘻孔の内部に毛髪や異物は認めなかった(図2)。

病理組織学的所見：HE染色で瘻孔壁は重層扁平上皮であり，角化層が目立っていた。HPV抗原に対する免疫染色は陰性だった(図3)。

術後経過：術後4カ月の時点で再発なく経過している。

考 察

本症例で皮膚瘻孔が生じた原因は不明であるが，過

去の報告を基にその可能性に関して考察した。皮膚瘻孔は先天性と後天性に大別できる。先天性の皮膚瘻孔として耳瘻孔が知られており，その原因は発生過程における耳介原基である耳介結節の癒合不全部分あるいは第1鰓溝の残痕であると考えられている¹。瘻孔発生部位を手足に限った場合，われわれが渉猟し得た限りでは先天性の皮膚瘻孔の報告は存在しなかった。また足趾の発生は趾間のアポトーシスにより生じるため，耳と同様の機序で瘻孔が生じることは考えにくい²。一方で，指間や趾間に発生する後天性の皮膚瘻孔として，毛巢洞の報告が散見される³。その他に慢性骨髓炎，感染症(結核，放線菌症)，異物残留によ

る報告も存在するが、本症例ではいずれも否定的であった。また足底に瘻孔をきたしうる HPV 関連皮様囊腫も免疫染色により確認したが否定された。

毛巣洞は 800~900⁹人に1人の割合で発生し、病因に関しては胎生期における神経管形成異常であるとする先天説⁶と、体毛の刺入により異物反応が惹起されるためとする後天説⁷が対立して論じられてきたが、現在ではその多くが後天性と認識されている⁸。病変は毛髪を含んだ瘻孔ないしは囊腫、肉芽腫を呈するものであり、仙骨部が好発部位であるが、まれに指趾間部に生じる。指趾間部に発生する毛巣洞は、Allington が理容師の指間に生じた炎症病変を報告した⁹のが最初とされており、interdigital pilonidal sinus¹⁰, barber's interdigital sinus¹¹などの名称で呼ばれており、後天性の機序が指摘されている。

手足に発生した毛巣洞は、2000年以降で指間部8例、趾間部3例が報告されており、いずれも理・美容師、ドッグトリマー、羊の毛刈り職人と毛に関連する職業であり、瘻孔内に毛髪や羊毛を認めた(表1)。Abdullah ら¹²は理容師の指間部に生じた瘻孔から、発生要因を毛髪による表皮の穿孔とその後の異物反応と推察している。また Vaiude ら¹³は羊の毛刈り職人で、病理では炎症反応と複数の羊毛が含まれていたことを報告している。これらから指趾間部の毛巣洞では毛髪が皮膚に刺さり、異物反応により瘻孔が生じ、さらに周囲の皮膚の擦れを介して瘻孔内へ毛髪が繰り返し刺入することで、瘻孔が拡大されたものと示唆される。本症例は、毛髪の曝露歴や瘻孔内に毛髪は認めなかったものの、指趾間部という発生部位と病理学的所見の類似から、趾間毛巣洞の可能性が高いと結論づけた。

結 語

小児の足趾に生じた皮膚瘻孔の一例を経験した。発生原因に関する確定診断は困難であるが、指趾間部の皮膚瘻孔は先天性の報告がなく、後天性の一つとして指間毛巣洞を念頭に置く必要があると考えられた。指趾間部の皮膚瘻孔はまれなため、将来的な発生原因の解明のためにも症例の蓄積が必要と考え報告した。

本文の要旨は、第14回日本創傷外科学会総会・学術集会(2022年7月14, 15日, 於兵庫)で発表した。

Conflict of Interest : 開示すべき利益相反はなし。

文 献

1. 平出文久, 澤田正道, 田中英一, 西澤伸志, 細川 智, 井上鉄三: 先天性耳瘻孔の臨床的検討. 臨床耳科 1984; 11: 218-219.
2. Jordan D, Hindocha S, Dhital M, Saleh M, Khan W: The Epidemiology, Genetics and Future Management of Syndactyly. The Open Orthopaedics Journal 2012; 6: 14-27.
3. 益子礼人, 山本剛伸, 吉岡敏子, 青山裕美: 炎症を繰り返し、足底に瘻孔形成をきたした HPV 関連表皮様囊腫. 皮膚科の臨床 2021; 63: 1729-1732.
4. Priyadarshi RN, Kumar M: Painless Progressive Swelling of the Foot with Discharging Sinuses. Am J Trop Med Hyg 2021; 105: 1129-1130.
5. 照屋 操, 山本雄一, 高木幸一(ほか): 毛巣瘻・膿皮症・蜂窩織炎について. 日本大腸肛門病会誌 1987; 40: 822-833.
6. Fox SL: The origin of pilonidal sinus; with an analysis of its comparative anatomy and histogenesis. Surg Gyn Obst 1935; 60: 137-149.
7. Brealy R: Pilonidal sinus, a new theory of origin. Br J Surg 1955; 43: 62-68.
8. 山中秀高, 小野 要, 佐藤達郎: 臍部毛巣洞の1例. 日本臨床外科学会雑誌 2005; 66: 758-761.
9. Allington HV: A case for diagnosis (foreign body reaction?). Arch Dermatol Syph 1942; 45: 614-615.
10. Matheson AD: Interdigital pilonidal sinus caused by wool. Aust NZ J Surg 1951; 21: 76-77.
11. Price SM, Popkin GL: Barber's interdigital hair sinus; A case report in a dog groomer. Arch Dermatol 1976; 112: 523-524.
12. Örs A, Kibar B: Bilateral interdigital pilonidal sinus of the hand in a male hairdresser. Jlt Dis Relat Surg 2021; 32: 523-525.
13. Vaiude P, Dhital MR, Hancock K: A true pilonidal sinus in the hand of a sheep shearer. J Surg Case Rep 2011; 12: 6.

(受付: 2023年6月25日)

(受理: 2023年8月16日)

日本医科大学医学雑誌は、本論文に対して、クリエイティブ・コモンズ表示 4.0 国際 (CC BY NC ND) ライセンス (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>) を採用した。ライセンス採用後も、すべての論文の著作権については、日本医科大学医学雑誌が保持するものとする。ライセンスが付与された論文については、非営利目的の場合、元の論文のクレジットを表示することを条件に、すべての者が、ダウンロード、二次使用、複製、再印刷、頒布を行うことができる。