

研 究

生後3か月未満で紹介された仙尾部皮膚所見を有する児に対する診療の現状

中村 早希^{1,2)}, 阪下 和美¹⁾, 中舘 尚也¹⁾, 岡本 礼子³⁾, 堤 義之³⁾
野坂 俊介³⁾, 窪田 満¹⁾, 石黒 精²⁾, 永井 章¹⁾

〔論文要旨〕

仙尾部皮膚異常は、潜在性二分脊椎症の診断につながる重要な身体所見である。出生後の診察、1か月健診、保健師訪問、一次診療の現場で仙尾部皮膚異常があると判断された場合、精査のため患者は二次または三次医療機関へ紹介されることが多いが、現時点で精査が必要な仙尾部皮膚所見について統一した見解はない。本研究の目的は、当センター総合診療部に仙尾部皮膚所見を主訴で紹介された症例において、それぞれの紹介理由と精査の実態を明らかにすることである。過去5年間に仙尾部皮膚異常所見の評価のため一次医療機関から当センター総合診療部へ紹介された月齢3か月未満の症例47人の診療録を後方視的に検討した。紹介症例の62%が出生直後または2週間および1か月健診で異常を指摘されていた。仙尾部皮膚所見の36%は国際的な診療指針では脊髄病変の合併率が低いとされている単純型仙尾部皮膚陥凹であり、臨床現場での単純型仙尾部皮膚陥凹のリスク評価の困難さ、その病態についての概念の解釈が、医師により異なることなどが示唆された。殿裂偏倚や二分殿裂を含むその他の皮膚所見に関しては、国際的な診療指針と相違はなかった。本調査から、医療者が仙尾部皮膚所見を適切に評価するために、統一した診断指針を提示することが必要と考えられた。

Key words : 単純型仙尾部皮膚陥凹, 仙尾部皮膚異常, dimple, 潜在性二分脊椎症, 脊髄超音波検査

I. はじめに

仙尾部皮膚異常は、潜在性二分脊椎症の診断につながる重要な身体所見である。そのうち単純型仙尾部皮膚陥凹 (simple dimple) は最も多い仙尾部皮膚所見で、新生児において肛門からの距離が2.5cm 未満で正中線に位置する直径0.5cm 未満の仙尾部皮膚陥凹と定義されている¹⁾。単純型仙尾部皮膚陥凹は、多くの前向き研究・後ろ向き研究で脊髄病変との関連性が低いとされており¹⁻⁵⁾、メタ解析で単純型仙尾部皮膚陥凹を有する症例での脊髄病変検出率は、3.4%と報告されている⁶⁾。また、殿裂偏倚や二分殿裂に関しても、それ

ぞれ単独の所見であれば脊髄病変の検出率は低いと報告されている⁴⁾。一方で、単純型仙尾部皮膚陥凹の基準を満たさない仙尾部皮膚陥凹や仙尾部の毛細血管腫・異常毛髪・腫瘤などは、潜在性二分脊椎症のリスクが高いとされている^{7,8)}。出生後の診察、1か月健診、保健師訪問、一次診療の現場で仙尾部皮膚異常があると判断された場合、精査のため二次または三次医療機関へ紹介されることが多いが、現時点で精査が必要な仙尾部皮膚所見について統一した見解はない。また、本邦の周産期・新生児医療に関わる多職種の医療者における単純型仙尾部皮膚陥凹の概念の周知度は不明である。本研究の目的は、当センター総合診療部に

Current Decision-making of Sacral Skin Lesions in Infants Referred under the Age of 3 Months
Saki NAKAMURA, Kazumi SAKASHITA, Hisaya NAKADATE, Reiko OKAMOTO, Yoshiyuki TSUTSUMI,
Shunsuke NOSAKA, Mitsuru KUBOTA, Akira ISHIGURO, Akira NAGAI

(3178)

受付 19. 9. 17

採用 20. 3. 6

1) 国立成育医療研究センター総合診療部 (医師)

2) 国立成育医療研究センター教育研修センター (医師)

3) 国立成育医療研究センター放射線診療部 (医師)

仙尾部皮膚所見を主訴に紹介された症例において、それぞれの紹介理由と精査の実態を明らかにすることである。

II. 研究方法

1. 設定

当センター総合診療部では、仙尾部皮膚異常のため一次医療機関から紹介された全症例を外来で診察し、皮膚所見の詳細を電子カルテに記載し、症例によっては仙尾部の写真撮影している。脊髄超音波検査は、椎弓骨化が完了する前の月齢の乳児へ非侵襲的に実施できる有用な検査であり⁹⁾、当センターでは臨床検査部において原則月齢3未満の児を対象として放射線科医が実施している。当センターへの紹介症例は、前医による画像検査の勧めが受診動機であることから、仙尾部皮膚所見の種類や程度にかかわらず脊髄超音波検査による評価を実施している。超音波検査方法は、腹臥位で固定した患児の腰仙部を7.5MHz以上のリニアプローブを用いて縦断像および横断像にてスキャンし、脊髄円錐下端レベルが第2/3腰椎椎間板腔(L2/3)レベル以下と同定した場合に、低位脊髄円錐と診断している⁹⁾。脊髄円錐下端レベル以外に、終糸の肥厚や超音波輝度上昇の有無・患児の拍動や呼吸による馬尾神経可動性の有無などを評価し、終糸脂肪腫の検索も行っている。超音波の使用装置は、東芝社製 AplioXG(プローブ PLT-805AT)および Aplio i800(プローブ PLT-1005BT)と、Siemens社製 ACUSON S2000(プローブ18L6)を使用している。

2. 対象

2013年6月から2018年5月までの5年間(60か月間)に、国立成育医療研究センター総合診療部へ他院から紹介され月齢3未満に脊髄超音波検査を施行した47症例に対して、電子診療録を用いて後方視的に調査した。

3. 調査内容

仙尾部皮膚異常が、いつ・どこで・誰に・どのように指摘されるのかについてのデータを得るために、紹介の契機および仙尾部皮膚所見を、電子診療録内に保存された診療情報提供書、診察記録および画像を用いて調査した。また、各症例の脊髄超音波検査結果、および2019年9月1日時点での、手術実施の有無・術後経過・患者追跡の状態についても調査した。

i. 紹介の契機

診療情報提供書から、紹介元医療機関の種類(産院、クリニック、保健福祉センター等)とその受診理由(出生直後の新生児診察、健診、予防接種を含めた仙尾部皮膚所見以外の日常診療、両親の強い希望等)を調査した。また、紹介に至った皮膚所見の特徴と診断に関する情報を記載されている範囲で症例ごとに抽出した。

ii. 仙尾部皮膚所見

当科受診時の診療録から、各症例の皮膚所見の種類(例:単純型仙尾部皮膚陥凹、複雑型仙尾部皮膚陥凹、殿裂偏倚、二分殿裂、スキントグ、毛細血管腫、異常毛髪、多毛、腫瘍)と特徴(仙尾部皮膚陥凹では直径・肛門からの距離・深さ、腫瘍についてはサイズ)に関する情報を抽出した。殿部の写真がある症例では、記載された情報が写真と一致しているか確認した。単純型仙尾部皮膚陥凹は、肛門からの距離が2.5cm未満で正中線に位置する直径0.5cm未満の仙尾部皮膚陥凹と定義し、複雑型仙尾部皮膚陥凹は、単純型仙尾部皮膚陥凹の定義を満たさない仙尾部皮膚陥凹と定義した。また、身体診察で小奇形の有無も確認した。

4. 分析方法

紹介の契機については、出生直後・2週間健診・1か月健診・日常診療・医師以外の医療従事者による指摘(看護師・保健師)・両親の強い希望等の社会的理由の6つに分類し、各々の割合を算出した。仙尾部皮膚所見の種類は、当センターでの診断に基づいてそれぞれの頻度を算出した。

本研究は国立成育医療研究センター倫理審査委員会の承認を得て実施した(承認番号2290)。

III. 結果

1. 紹介の契機

47症例の紹介の時機としては、出生直後が全体の28%、2週間および1か月健診が34%を占め、半数以上が出生直後や1か月健診で仙尾部皮膚異常を指摘されていた(表1)。ワクチン接種や乳児湿疹の診察目的で一次医療機関へ受診した際に仙尾部皮膚異常を指摘された症例(17%)や、母乳外来および自宅訪問で看護師や保健師など医師以外の医療従事者に指摘され一次医療機関の受診に至った症例(4%)も認めた。家族の解釈モデルはさまざまであったが、中には医療

表1 仙尾部皮膚異常を指摘された契機の調査 (n = 47)

契機	n	%
出生直後	13	28%
2週間・1か月健診	16	34%
日常診療	8	17%
医師以外の医療従事者による指摘 (母乳外来・保健師)	2	4%
社会的理由 (両親の強い希望)	1	2%
不明	7	15%

者から言われた単語をインターネットで検索し, 不安を強く持って受診する症例もあった。

2. 仙尾部皮膚所見の内訳

47例のうち36%が潜在性二分脊椎症のリスクが低いとされている単純型仙尾部皮膚陥凹であった(図1)。単純型仙尾部皮膚陥凹のうち, 深さを理由に紹介となった症例が35%を占め, 残り65%の紹介理由は不明であった。単純型仙尾部皮膚陥凹の次に紹介数が多かった仙尾部皮膚所見は殿裂偏倚(30%)で, 複雑型仙尾部皮膚陥凹(19%)と二分殿裂(11%)が後に続いた。当センターで診察した単純型仙尾部皮膚陥凹, 複雑型仙尾部皮膚陥凹, 殿裂偏倚, 二分殿裂の代表的な仙尾部写真を示す(図2)。また, 仙尾部皮膚所見以外に, 身体診察で小奇形を合併した症例は認めなかった。

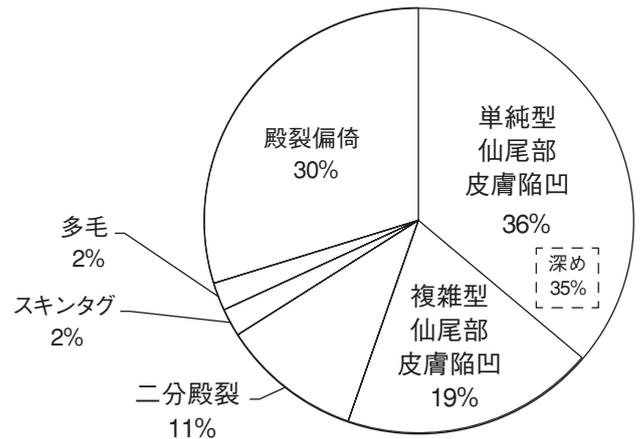


図1 紹介症例の仙尾部皮膚所見の内訳 (n=47)

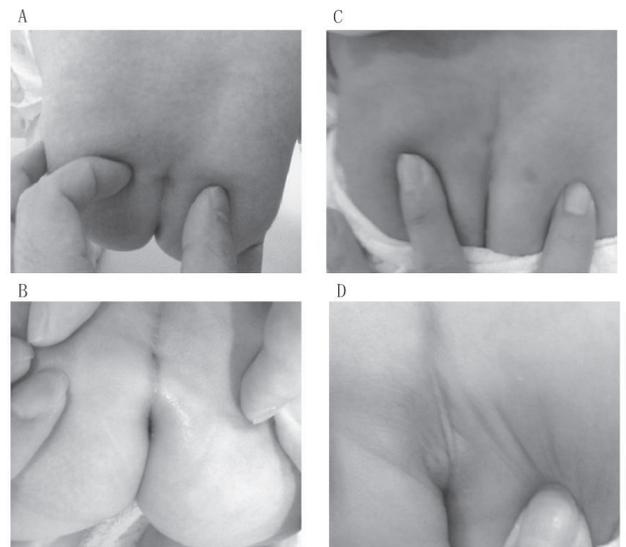


図2

3. 脊髄超音波検査の結果

47症例のうち超音波検査で異常を指摘されたのは10症例(21%)で, 仙尾部皮膚所見として3例に複雑型仙尾部皮膚陥凹, 5例に殿裂偏倚, 1例に二分殿裂,

表2 脊髄超音波検査結果: 陽性例のまとめ

症例	受診時月齢	仙尾部皮膚所見	脊髄超音波検査
1	2	複雑型仙尾部皮膚陥凹	低位脊髄円錐 (L2/3)
2	1	殿裂偏倚	終糸脂肪腫
3	2	殿裂偏倚	低位脊髄円錐 (L2/3)
4	1	殿裂偏倚	終糸脂肪腫
5	1	複雑型仙尾部皮膚陥凹	低位脊髄円錐 (L2/3) 終糸脂肪腫
6	1	複雑型仙尾部皮膚陥凹	低位脊髄円錐 (L2/3)
7	2	殿裂偏倚	低位脊髄円錐 (L2/3)
8	2	殿裂偏倚	終糸脂肪腫
9	2	スキンタグ	低位脊髄円錐 (L2/3)
10	1	二分殿裂	低位脊髄円錐 (L3) 終糸脂肪腫

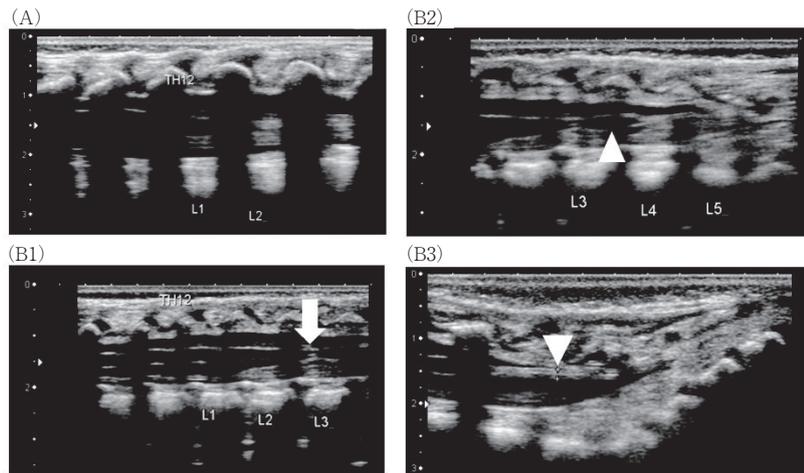


図3 代表的な脊髄超音波検査所見

- (A) 正常脊髄と判断された単純型仙尾部皮膚陥凹を有した月齢2の腰仙部縦断像（脊髄円錐レベル）：脊髄下端は尾側（右側）に向かって細くなり、円錐状となってL2レベルで終わっている。
- (B1) 低位脊髄円錐と終糸脂肪腫を認めた二分殿裂を有した月齢1の腰仙部縦断像（脊髄円錐レベル）：脊髄円錐下端は、椎体L3上部（矢印）に位置しており、低位脊髄円錐と診断された。
- (B2) 円錐下端に接して紡錘状の無エコー構造を認め、終糸嚢胞（三角矢印）を伴っていた。
- (B3) 終糸は肥厚しており（三角矢印）終糸脂肪腫が疑われた。

1例にスキントグを認め、単純型仙尾部皮膚陥凹で脊髄病変を認めた症例はなかった。脊髄病変としては、低位脊髄円錐を7例、終糸脂肪腫を5例に認め、うち2例は両病変を合併していた（表2）。脊髄病変を認めなかった代表的な単純型仙尾部皮膚陥凹症例と、二分殿裂を指摘され低位脊髄円錐（L3）と脊髄脂肪腫を認めた症例10の脊髄超音波検査の所見を示す（図3）。なお、上記の10例のうち、MRIで超音波検査と同様の脊髄病変を認めた症例は6例（表2の症例1, 3, 5, 6, 8, 10）で、うち5例（表2の症例1, 5, 6, 8, 10）に対して当センター脳神経外科が稽留脊髄解除術を行った。手術が施行された5症例は、術後11か月から1年6か月経過しているが、特に症状を認めていない。手術が実施されていない1症例（表2の症例3）に対しても、今後稽留脊髄解除術が予定されている。

IV. 考 察

仙尾部皮膚所見の診療について統一した見解はないため、一次医療機関で精査が必要と判断された症例の紹介理由と精査の実態について仙尾部皮膚所見ごとに検討した結果について考察する。

1. 単純型仙尾部皮膚陥凹を認めた紹介症例の検討

紹介症例のうち、36%が潜在性二分脊椎症のリスクが低いといわれている単純型仙尾部皮膚陥凹を認

める症例であった。単純型仙尾部皮膚陥凹のうち、35%が陥凹の深さを理由に紹介されており、深い皮膚陥凹の臨床的判断に苦渋する場面が多いことがうかがわれる。過去の海外報告では、リスクが低いとされる単純型仙尾部皮膚陥凹では、その深さは問われておらず¹⁻⁵⁾、健康な新生児においては、皮膚陥凹が殿裂内に位置すれば低リスクとされている^{8,10)}。Diasは、皮膚陥凹の深さは重要でなく、頭尾軸における皮膚陥凹の位置が最も重要であると米國小児科学会のclinical reportで提唱している¹¹⁾。わが国でもさらに周知が必要と考えられる。

殿裂内に位置する深い皮膚陥凹を異常所見と判断し、精査の対象とする理由としては、リスクが低いとされる仙尾部皮膚陥凹を皮膚洞と混同してしまうことにある⁸⁾。本調査でも、当科外来での診察では単純型仙尾部皮膚陥凹と診断されたが、診療情報提供書には「先天性皮膚洞」あるいは「毛巣洞」と記載されていた症例を複数認めた。単純型仙尾部皮膚陥凹を含めたリスクが低いとされる仙尾部皮膚陥凹は殿裂内に位置し、リスクが高いとされる皮膚洞は仙尾部より頭側の腰仙部（殿裂外）に位置し脊髄との交通を認めるもので、両者は異なる。発生学的には、皮膚洞は発生第2～4週に起こる一次神経管形成において、外胚葉由来の神経板が表皮外胚葉からくびれ切れずに表皮外胚葉とつながることで生じる。皮膚洞は頸部から腰仙部の脊髄正中線上に発生するが、閉鎖の過程が最も複雑で

ある神経管尾側の後神経孔の位置に一致してS2に多く発生する^{8,12)}。一方, 単純型仙尾部皮膚陥凹が位置するS3以下の神経管は, 発生第4~6週に起こる二次神経管形成において形成され, 中胚葉性間葉細胞由来の細胞に由来している。この過程はすでに形成されている表皮外胚葉の下で行われるため, 皮膚と脊髄との交通は生じない^{6,8,12)}。

深い仙尾部皮膚陥凹を超音波検査およびMRIで精査したWilsonらの報告では, 全50症例のうち異常を認めたのは1症例であった⁵⁾。この1例では腫瘍を認めたが, 手術には至らなかった。原田らの研究では, 殿裂内陥凹のある84症例に対してMRI検査を行い, 16.7%に終糸脂肪腫を認め, 陥凹の深さをリスク因子と結論づけている¹³⁾。しかし, 対象の年齢が月齢3~39と幅広く, 仙尾部皮膚異常以外の先天性異常を伴う症例も含まれており, 健康な新生児を対象としている報告とは調査の背景が異なる。本調査では, 表2に示したように, 超音波検査で異常を指摘された単純型仙尾部皮膚陥凹の症例はなかった。

基礎疾患のない健康な新生児において皮膚陥凹が殿裂内に位置していれば, その深さは問題とならず精査を行わないという海外の傾向に反して, 本調査では, 医療者が主観的に深いと感じた単純型仙尾部皮膚陥凹をリスクの高い皮膚異常と判断し精査を勧める傾向を認めた。脊髄病変を有するリスクの高いまたは低い皮膚所見に関して, 医療者の共通認識がないこと, さらに両者を混同している可能性が示唆された。皮膚陥凹の直径と肛門からの距離を実測することが普及していないことも問題である。忙しい健診の場で発育・発達・各臓器の評価に加え, 仙尾部皮膚陥凹の評価に時間を割くことが難しい可能性が考えられた。前述のとおり, 健康な新生児の殿裂内に位置する多くの皮膚陥凹は低リスクと考えられるため, 計測が困難な場合は, 陥凹が殿裂外に位置するかどうかで判断することも実用的と考えられた。

ただし, 単純型仙尾部皮膚陥凹には脊髄病変が存在しないと論じているわけではない。現時点で仙尾部皮膚異常を有しない小児での潜在性二分脊椎症の有病率について調査した研究はないが, 仙尾部皮膚所見を有する症例での脊髄病変検出率について検討した前向き研究において, 105例の仙尾部皮膚所見を認めない新生児症例のコントロール群のうち, 5症例(4.8%)に脊髄超音波検査で低位脊髄円錐や脊髄

稽留を認めている¹⁴⁾。つまり, 正常の仙尾部皮膚所見と判断される症例においても, 精査をすれば低位脊髄円錐や脊髄稽留が発見される可能性がある。単純型仙尾部皮膚陥凹を有する症例での病変検出頻度はメタ解析で3.4%と報告されており⁶⁾, 正常の仙尾部皮膚所見症例における頻度と変わらない。仙尾部皮膚所見の中でも単純型仙尾部皮膚陥凹の脊髄病変の検出率は低いとされているという共通概念を医療者が持ったうえで, 精査の適否を判断し, 家族への説明をするべきであると考えられる。

2. 殿裂偏倚と二分殿裂について

海外でも, 殿裂偏倚と二分殿裂は単純型仙尾部皮膚陥凹よりも精査対象とされることが多い仙尾部皮膚所見である¹⁵⁾。Schroppらは, 脊髄脂肪腫との関連があるとし殿裂偏倚を高リスク病変と報告しているが, この報告で脊髄脂肪腫を認めた症例では, 殿裂偏倚に加えて仙尾部の腫瘍など, 複数の仙尾部異常所見を呈していた¹⁶⁾。Ben-Siraらは, 殿裂偏倚と二分殿裂をdeviated gluteal fold (DGF)という同一のカテゴリーに分類し, DGFのみの単独の所見を呈する症例で脊髄病変のリスクは低いと報告した⁴⁾。しかし, DGFと潜在性二分脊椎症の関連を検証した前向き研究は現時点でBen-Siraの研究のみであり, さらなる研究報告が蓄積するまでは, DGFに対しては精査が望ましいと考えられた。

3. その他の皮膚異常所見について

仙尾部の異常毛髪, 血管腫(乳児血管腫および毛細血管腫), cigarette burn, 皮下腫瘍, スキンタグは, 正常な新生児の3%にしか認めず高率に脊髄病変を伴うため¹⁷⁾, 精査の対象である^{7,8)}。

4. 研究の限界と課題

本研究は総合小児科である当センター総合診療部内での検討にとどまるため, 脳神経外科を主とする専門科への仙尾部皮膚所見の紹介症例の実態とは一致していない可能性がある。また, 単施設での調査であり, 医療体制の地域的特性や紹介元医療機関の偏りによる選択バイアスが存在するため, 本研究結果から, 仙尾部皮膚所見の全国的な治療方針の傾向を把握することは困難である。しかしながら, 本邦の仙尾部皮膚所見の精査依頼の実態調査は過去に行われておらず, 医療

者が要精査と判断した仙尾部皮膚所見の詳細を明らかにした意義は大きいと考える。

また、本研究は紹介症例の仙尾部皮膚所見と脊髄超音波検査の結果までの調査であり、超音波検査で異常所見を認めた症例の治療や管理および予後についての議論は困難である。症候性の潜在性二分脊椎症の一部では、手術により症状の改善が期待できるが¹⁸⁾、無症候性の潜在性二分脊椎症では、その自然歴が不明であり、予防的な稽留解除術の是非については結論が出ていない¹⁸⁻²¹⁾。当センターでの手術例では、現時点では術後の合併症をきたしていないが、一部の症例では、脂肪腫切除や稽留解除が困難であったり、術後再度脊髄稽留をきたしたりすることが報告されている^{18,19)}。予防手術が実施された患者の予後を明らかにするために、今後は各施設での長期的な経過観察とさらなる研究報告の蓄積が必要と考えられる。

5. 結 語

本調査から、周産期・新生児医療に関わるすべての医療従事者が仙尾部皮膚所見を適切に評価するために、今後、医療者への周知の場が必要と考えられた。無症候性の潜在性二分脊椎症に対する予防手術の評価は定まっていない。また、いつまでに診断するのが望ましいのかを示すこともできないが、予防手術を実施するかについての判断も含め、早期に脳神経外科を中心とした専門科による評価につなげる必要がある。そのためには、周産期医療に携わる医療者が仙尾部皮膚異常を適切に評価し、無症候のうちに潜在性二分脊椎症を早期診断することが重要である。今後は、複数の施設での調査を行い、仙尾部皮膚所見の全国的な精査の実態を明らかにし、国際的な診断指針を取り入れながら統一した診断指針を提示することが望まれる。

本論文の一部を、第122回日本小児科学会学術集会(2019年4月21日)で発表した。本論文に関しての研究費助成はない。

利益相反に関する開示事項はありません。

文 献

- 1) Kriss VM, Desai NS. Occult spinal dysraphism in neonates : assessment of high-risk cutaneous stigmata on sonography. *AJR Am J Roentgenol* 1998 ; 171 : 1687-1692.
- 2) Ausili E, Maresca G, Massimi L, et al. Occult spinal dysraphisms in newborns with skin markers : role of ultrasonography and magnetic resonance imaging. *Childs Nerv Syst* 2018 ; 34 : 285-291.
- 3) Kucera JN, Coley I, O'Hara S, et al. The simple sacral dimple : diagnostic yield of ultrasound in neonates. *Pediatr Radiol* 2015 ; 45 : 211-216.
- 4) Ben-Sira L, Ponger P, Miller E, et al. Low-risk lumbar skin stigmata in infants : the role of ultrasound screening. *J Pediatr* 2009 ; 155 : 864-869.
- 5) Wilson P, Hayes E, Barber A, et al. Screening for spinal dysraphisms in newborns with sacral dimples. *Clin Pediatr* 2016 ; 55 : 1064-1070.
- 6) Albert GW. Spine ultrasounds should not be routinely performed for patients with simple sacral dimples. *Acta Paediatr* 2016 ; 105 : 890-894.
- 7) Drolet BA. Cutaneous signs of neural tube dysraphism. *Pediatr Clin North Am* 2000 ; 47 : 813-823.
- 8) Dias M, Partington M. Congenital brain and spinal cord malformations and their associated cutaneous markers. *Pediatrics* 2015 ; 136 : e1105-1119.
- 9) 前島基志, 東澤恭介, 安井一浩, 他. 新生児から乳児期早期における脊髄超音波検査の有用性. *超音波検査技術* 2014 ; 39 : 11-21.
- 10) Zywicke HA, Rozzelle CJ. Sacral dimples. *Pediatr Rev* 2011 ; 32 : 109-114.
- 11) Dias MS. Innocent pits and dermal sinus tracts : an often-misdiagnosed distinction. *AAP News* 2010 ; 31 : 39, DOI : 10.1542/aapnews. 2010317-39.
- 12) Ackerman LL, Menezes AH. Spinal congenital dermal sinuses : a 30-year experience. *Pediatrics* 2003 ; 112 : 641-647.
- 13) Harada A, Nishiyama K, Yoshimura J, et al. Intraspinal lesions associated with sacrococcygeal dimples. *J Neurosurg Pediatr* 2014 ; 14 : 81-86.
- 14) Gibson PJ, Britton J, Hall DM, et al. Lumbosacral skin markers and identification of occult spinal dysraphism in neonates. *Acta Paediatr* 1995 ; 84 : 208-209.
- 15) Ponger P, Ben-Sira L, Beni-Adani L, et al. International survey on the management of skin

- stigmata and suspected tethered cord. *Childs Nerv Syst* 2010 ; 26 : 1719-1725.
- 16) Schropp C, Sorensen N, Collmann H, et al. Cutaneous lesions in occult spinal dysraphism : correlation with intraspinal findings. *Childs Nerv Syst* 2006 ; 22 : 125-131.
- 17) Powell KR, Cherry JD, Hougen TJ, et al. A prospective search for congenital dermal abnormalities of the craniospinal axis. *J Pediatr* 1975 ; 87 : 744-750.
- 18) Xenos C, Sgouros S, Walsh R, et al. Spinal lipomas in children. *Pediatr Neurosurg* 2000 ; 32 : 295-307.
- 19) Arai H, Sato K, Okuda O, et al. Surgical experience of 120 patients with lumbosacral lipomas. *Acta Neurochir (Wien)* 2001 ; 143 : 857-864.
- 20) Kulkarni AV, Pierre-Kahn A, Zerah M. Conservative management of asymptomatic spinal lipomas of the conus. *Neurosurgery* 2004 ; 54 : 868-875.
- 21) Neuroinfo Japan 脳神経外科疾患情報ページ. “脊髄膜瘤 (脊髄披裂)” <https://square.umin.ac.jp/neuroinf/medical/602.html> (参照2019-12-12)

[Summary]

Dorsal midline skin stigmata are important as they are associated with occult spinal dysraphism. Therefore, when a cutaneous anomaly is encountered in a primary care setting, the patient is usually referred to a secondary care facility for further evaluation. There are many clinical studies, both prospective and

retrospective, that investigated the risk of such skin lesions, especially sacral dimples. However, there is still no consensus on which skin lesions should undergo imaging studies. We retrospectively investigated 47 infants younger than 3 months who were referred to our hospital in Tokyo, Japan for spinal ultrasonography, after their skin stigmata were evaluated as high-risk by their primary care physicians. All skin lesions were re-examined by physicians at the Department of General Pediatrics at our hospital before their ultrasound examination. Sixty-two percent of the patients were either referred immediately after birth, or at their newborn checkup at 2 weeks or 1 month. Thirty-six percent of the patients had simple dimples, a cutaneous lesion reported to be low-risk ; this was the most referred skin lesion. This suggested that assessment of simple dimples can sometimes be difficult in a primary care setting. Deviated gluteal folds and bifurcated gluteal folds were the second most referred stigmata, which seemed to be congruent with international tendencies ; a prospective study demonstrated that isolated gluteal fold or forking have a low association with occult spinal dysraphism, but imaging of abnormal folds is still common worldwide. Our study suggests that understanding of dorsal midline skin stigmata among health care professionals lacks uniformity, and that establishment of clinical practice guidelines is necessary.

[Key words]

sacral dimples, skin stigmata, occult spinal dysraphism, spinal ultrasonography