

ISTITUTO DI ANATOMIA E ISTOLOGIA PATOLOGICA  
DELL'UNIVERSITA' DI SASSARI

Direttore: Prof. L. Craxi

TERATOMA SACRO-COCCIGEO  
A PREVALENTE COMPONENTE ENTERICA

Dott. GIANCARLO DE RIU

Dott. ROMEO PAPANDREA

Un caso recentemente osservato, che per i suoi caratteri riteniamo di dover inquadrare tra i cosiddetti teratomi della regione sacro-coccigea, ci offre lo spunto per intrattenerci su un capitolo della patologia la cui interpretazione è tuttora discussa per le incertezze che ancora sussistono sui limiti fra Teratologia e Oncologia.

CASO CLINICO

M. A. - Bambina di gg. quaranta, primogenita

Nata dopo gravidanza e parto normale da genitori apparentemente sani, non consanguinei. Nell'anamnesi degli ascendenti e dei collaterali nulla di particolare rilievo specie in rapporto a malformazioni congenite.

Fin dalla nascita i genitori hanno notato nella regione sacro-coccigea la presenza di una tumefazione il cui volume è andato progressivamente aumentando fino a raggiungere l'attuale, senza peraltro ostacolare la defecazione e la minzione.

*Esame obiettivo.*

Bambina in buone condizioni di nutrizione, stato di sviluppo pari all'età. Nulla di patologico all'esame clinico generale. Sensibilità e mobilità degli arti normale.

*Esame locale.*

L'estremo podalico è deformato dalla presenza di una tumefazione ovoidale del volume di un uovo di struzzo, che occupa con una larga base d'impianto la regione sacro-coccigea e sconfina nelle regioni glutee

DE RIU' - PAPANDREA - TERATOMA SACRO-COCCIGEO

abolendo il solco intergluteo (fig. 1). In avanti la tumefazione si spinge verso la regione perineale spostando l'orificio anale. E' ricoperta da cute tesa e lucente soprattutto nella parte più prominente ove si disegna un evidente reticolo venoso. I limiti sono netti verso l'alto, mentre lateralmente e anteriormente sfumano gradatamente nei tessuti circostanti.

Nella parte più sporgente la tumefazione ha superficie liscia e consistenza fluttuante, mentre verso la base d'impianto si presenta



Fig. 1

bernoccoluta e di consistenza dura fibrosa. Non è riducibile con la pressione, non è dolorabile, e durante il pianto mantiene invariato il suo volume e la sua consistenza.

#### *Operazione*

In anestesia locale novocainica si pratica incisione trasversale ellittica sulla regione sacrale in prossimità della base d'impianto del tumore, incontrando un piano di scollamento che consente di isolarlo dalla superficie posteriore del sacro e del coccige merce la sezione di tenaci aderenze fibrose. Anteriormente la massa in via tra retto e coccige

un prolungamento del volume di una noce circa, che viene pure asportato.

Emostasi, drenaggio tubolare, sintesi parziale della ferita.

Morte dopo venti ore.

#### REPERTO ANATOMO-PATOLOGICO

Il pezzo asportato è una massa di forma pressochè ovoidale, del peso di 500 gr., costituita per la maggior parte da un corpo compatto consistente e pieno, e da una formazione cistica della grandezza di una grossa arancia contenente 200 cc. di un liquido giallo-grigiastro, lievemente torbido; ha un colorito tendente al grigio chiaro, variato qua e là da zone di un tono più scuro ed è avvolto da una capsula molto spessa; la superficie non è piana ma irregolare per la presenza di bozze e rilievi sparsi senz'ordine.

Aperta la massa, a tutto spessore l'interno della cisti appare notevolmente irregolare per la presenza di numerosi cordoncini biancastri, del diametro di mezzo cent. circa, che decorrono in tutti i sensi e si intersecano fra di loro, ora sporgenti in cavità per tratti più o meno lunghi, ora aderenti alle pareti della cisti in tutto il decorso. La parte solida presenta una superficie di taglio non omogenea, formata da lobuli rotondeggianti e ovoidali di varia grandezza, limitati perifericamente da bande di un tessuto che ha i caratteri del connettivo fibroso: nel contesto di questa struttura spiccano numerose cavità cistiche a pareti lisce, irregolari per forma ed ampiezza, della grandezza da un grano di miglio ad una piccola lenticchia.

#### ESAME ISTOLOGICO

Numerosi frammenti, prelevati da varie parti della massa vengono inclusi e tutte le sezioni ottenute sono colorate con i seguenti metodi; ematossilina-eosina, Van Gieson, Sudan rosso e nero, Mac Manus (P.A.S.), Gomori per l'argento, blù di toluidina per la metacromasia, Bodian.

L'esame a piccolo ingrandimento dimostra in tutti i preparati un quadro eterogeneo per la presenza di diversi tipi di tessuto irregolarmente commisti fra loro e rappresentati in misura quantitativamente variabile da zona a zona.

E' possibile una -rossolana distinzione fra zone periferiche della neoformazione, a struttura prevalentemente compatta, e zone centrali caratterizzate dal riscontro di numerose formazioni adenomatose di

forma e volume vario, frequentemente dilatate fino ad assumere l'aspetto di formazioni cistiche di varia grandezza. Dette formazioni adenomatose risultano a volte ravvicinate fra loro con interposizione di scarso tessuto, altre distanziate; prevale però la tendenza alla formazione di aggruppamenti ghiandolari ed in questi le ghiandole risultano di volume ineguale (fig. 2).

Si tratta di formazioni ghiandolari fornite di evidente membrana basale sulla quale poggia un epitelio cilindrico in genere monostratifi

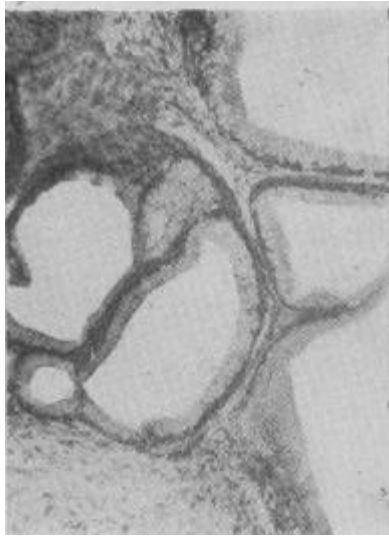


Fig. 2

cato, costituito da voluminose cellule con nucleo piccolo e rotondeggiante a sede basale e ampio citoplasma intensamente Pas positivo. Tali caratteristiche dell'epitelio di rivestimento si mantengono anche là dove le ghiandole risultano notevolmente dilatate ed assumono morfologia cistica. La esistenza in queste formazioni cistiche di tratti speroniformi, sporgenti nel lume stesso della cisti, può giustificare l'ipotesi che le cisti si formino oltre che per dilatazione, anche per confluenza di più formazioni ghiandolari.

L'esame a forte ingrandimento di queste formazioni conferma la identità di esse con le ghiandole mucose del grosso intestino.

Oltre il tessuto ghiandolare, a dislocazione come già detto prevalentemente centrale, si riscontrano nella massa neoformata altri diversi tipi di tessuto:

a) un tessuto lasso con elementi cellulari ora rotondeggianti ora fusati, distanziati da abbondante sostanza intercellulare, morfologicamente interpretabili come zone di tessuto mesenchimale indifferenziato; caratteristico di queste zone appare il riscontro di ampie lacune capillari (fig. 3) ;

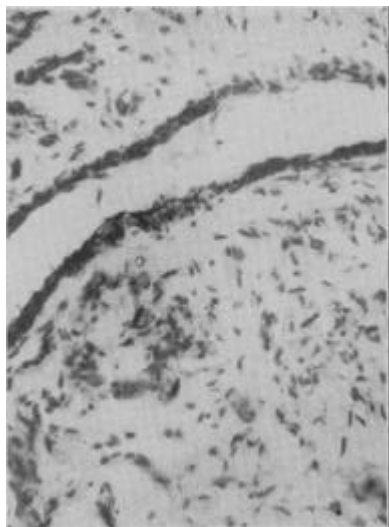


Fig. 3

b) zone di tessuto relativamente scarso in elementi cellulari fusati, a morfologia fibrocitica. In corrispondenza di queste zone le metodiche argentiche mettono in evidenza scarsa quota reticolare costituita da fascetti tozzi ed irregolari, mentre prevalente risulta la quota collagene;

c) zone più o meno estese di tessuto adiposo, a morfologia adulta;

d) zone di tessuto nervoso in genere relativamente estese e ben delimitate dai tessuti vicini: coll'uso dei metodi specifici esse risultano

costituite da scarso numero di cellule nervose di modesto volume, ad unico prolungamento, da cellule gliali e da un fitto intreccio di fibrille gliali; il prolungamento neuritico delle cellule nervose può in certi casi essere seguito per brevissimo tratto (fig. 4) ;

e) isole cartilaginee a netto contorno in genere, ben delimitate dai tessuti vicini, costituite da voluminose cellule cartilaginee irregolarmente disposte, separate da abbondante sostanza fondamentale intensamente reagente in senso metacromatico (fig. 5) e lamelle ossee

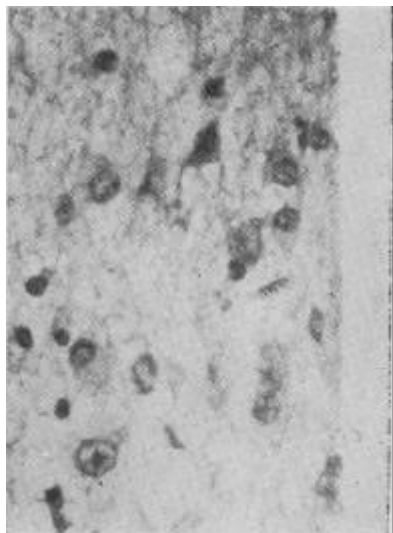


Fig. 4

complete, accostate fra loro e delimitanti spazi midollari nei quali, accanto a una prevalente quota stromale, si evidenziano anche elementi orientali in senso mieloide (fig. 6) ;

f) fibrocellule muscolari striate, isolate o addossate in formazioni fascicolari, per lo più di pochi elementi.

#### INTERPRETAZIONE E DISCUSSIONE

Si pone anzitutto il problema fondamentale della interpretazione del reperto: malformazione o tumore? L'interesse di una tale distinzione appare logico giacchè i limiti fra malformazioni e tumori sono tutt'ora campo di notevoli incertezze che dipendono, come afferma il

Giordano, almeno per una buona parte, dall'incerto, mal definito e non definitivo bagaglio di cognizioni etiopatogenetiche a riguardo dei tumori. Willis p.e. considera i teratomi veri tumori ed anche Ewing li comprende nel grande capitolo della Oncologia assieme alle cisti dermoidi, ai tumori misti e ai mostri doppi asimmetrici, mentre altri (Barbacci, Borst, Askanazy) li considerano malformazioni.

In parte, la differenza di opinioni riteniamo sia da ascrivere alle disparità strutturali delle formazioni che vengono comprese sotto il

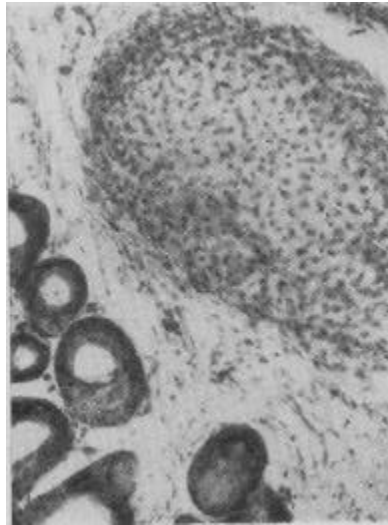


Fig. 5

nome di teratomi, disparità che giustificano la distinzione dei teratomi fatta da Borst e Askanazy in due grandi classi, facendo rientrare nella prima (teratomi semplici o parassitici di Borst, teratomi adulti o coetanei di Askanazy) le malformazioni, e nella seconda (teratomi blastomatosi di Borst, teratomi embrionali di Askanazy) quelle forme in cui i caratteri di accrescimento autonomo, afinalistico ecc. denunciano nettamente la natura blastomatosa.

Esiste quindi a ragion veduta la possibilità di abbozzare una divisione e escludere dal campo della oncologia le malformazioni doppie qualunque esse siano, e affrontare poi lo studio dei rapporti fra mal-

formazioni e tumori sulla base delle caratteristiche biologiche ed istologiche.

I reperti istologici da noi osservati dimostrano la presenza di tessuti derivati da tutti tre i foglietti embrionali variamente commisti fra loro senza che si possa scorgere alcun accenno a formazioni ben definite e senza che in nessun punto siano dimostrabili deviazioni a tipo blastomatoso. I vari costituenti dimostrano di aver raggiunto una certa completezza evolutiva, come si può giudicare dal carattere delle

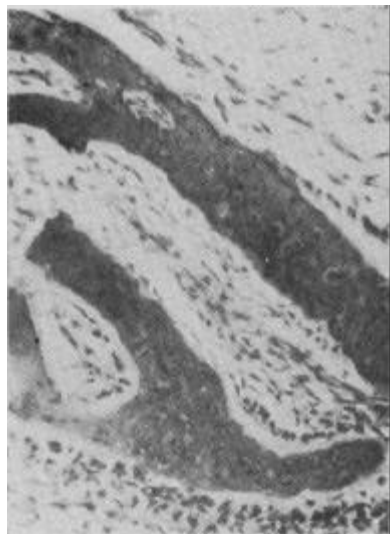


Fig. 6

ghiandole mucose di tipo intestinale, del tessuto muscolare striato, del tessuto osseo e cartilagineo, del tessuto nervoso.

Tutto ciò induce ad orientare il giudizio diagnostico verso il teratoma trifillico, che per l'assenza di caratteristiche blastomatose riteniamo di dover ascrivere alla h classe di Borst e Askanazy, interpretandolo quindi come una malformazione.

Molte teorie sono state emesse per spiegare queste malformazioni senza che per altro l'argomento risulti ancora chiarito: noi ricorderemo brevemente le più importanti.

E' noto anzitutto che nel gruppo delle disontogenie si inquadrano



quelle anomalie morfologiche che conseguono o ad un errore di prima formazione o ad un errore di sviluppo, e in senso stretto secondo Redaelli, le disontogenie sono più propriamente errori di sviluppo, in quanto per errori di prima formazione dovrebbero intendersi le disgenesie, gravissime malformazioni dei primissimi momenti formativi.

Redaelli divide le disontogenie in:

- a) disontogenie di individuo;
- b) disontogenie di organo;
- c) disontogenie di tessuto,

e ascrive ad esse una genesi formale

- 1) da amartie;
- 2) da coristie;

3) da organi o tessuti embrionali destinati solitamente ad evolvere e che invece persistono;

- 4) da materiali di riempimento di fessure embrionali.

Questi difetti evolutivi dell'embrione, soprattutto le disontogenie di tessuto che spesso sono assai fini e svelabili solo dopo attenti esami istologici, possono evidentemente nelle forme meno gravi rimanere silenti per tutta la vita o essere casuale reperto di intervento chirurgico o di autopsia, ma possono, in un discreto numero di casi, evolvere e proliferare fino alla costituzione di vere neoformazioni che sono interpretate come delle pure neoplasie da parte di numerosi AA., e alle quali è stato concordemente assegnato il nome di tumori disontogenetici, pur senza perdere di vista il lato importante che nella quasi totalità dei casi vi è un carattere e un decorso benigno.

Per questo non vogliamo ignorare che a proposito della natura di questi tumori Redaelli avanza l'opinione che essi debbano andare nettamente distinti dai processi neoplastici perchè mancano di quei caratteri (neoformazione atipica, autonoma, afinalistica e progressiva) che invece sono necessariamente propri delle forme blastomatose, e che per neoplasie disontogenetiche si devono intendere quelle rare forme che si sviluppano sì da precedenti disontogenie, ma che assumono i caratteri tipici dei blastomi, come certi epitelomi spino-cellulari insorgenti su epidermoidi cutanei e certi tumori misti della parotide a tipo maligno.

Comunque questi tumori, invece di derivare dalla proliferazione di un solo tessuto, derivano dalla contemporanea proliferazione di più tessuti e poichè possono prendere origine da elementi derivanti da uno o più foglietti embrionali, si distinguono in monodermomi, bidermomi

e tridermomi, per quanto più solitamente, a giudicare dalle modalità d'insorgenza della proliferazione, si parli di tumori misti semplici e complessi e di teratomi. Questi sono certamente i più complessi fra i tumori disontogenetici e probabilmente derivano da abbozzi embrionali molto primitivi, se non addirittura dai primi blastomeri e ne sono sedi elettive di impianto il testicolo e l'ovaio, l'ipofisi e l'epifisi, il mediastino, i tessuti retroperitoneali e la regione sacro-coccigea.

L'eziologia è completamente oscura e i tentativi di interpretazione dati fin'ora non possono essere accolti perchè incerti e troppo teorici. Alcuni AA. (De Vecchi, Mandelstamm, Kaltonski, Rossi e Bertapelle) avanzano, per il frequente riscontro di anomalie in più membri di una stessa famiglia (Lucksch e Ringelhan riportano il caso di due fratelli portatori di teratoma proprio nella stessa sede), la possibilità di un fattore ereditario: il Briziarielli, nel presentare un caso di teratoma sacro-coccigeo in un piccolo bambino, per il fatto che la madre era a sua volta figlia di una donna che aveva messo alla luce un anencefalo, prospetta anch'egli l'eventualità di una causa ereditaria: ma si tratta a nostro avviso di supposizioni che almeno per il momento non possono portare nessun contributo capace di chiarire la complessa questione.

Dal punto di vista patogenetico l'interpretazione più antica è quella che fa capo alla scuola tedesca di Ahfeld, di Braune e di Middeldorpf. Quest'ultimo riporta nel Virchows Archiv un caso capitato alla sua osservazione riguardante una bambina di un anno portatrice di una voluminosa massa in sede sacrale che dopo l'asportazione risultò, in base ai vari esami praticati, inquadrabile fra i teratomi. Nel contesto dei tessuti teratomatosi l'autore riscontrò all'esame istologico tratti di intestino con tutti i normali caratteri. L'A. nella discussione del caso accetta la concezione di Braune secondo la quale il teratoma deve essere considerato come una rudimentale formazione gemellare o come parte di un feto parassita, di un gemello atrofizzato incluso nell'altro con regolare sviluppo. Per spiegare l'inclusione intestinale l'A. si riporta a tutta una serie di ricerche di embriologia che per merito soprattutto di Kowalewski fanno conoscere che in molti animali della più bassa scala zoologica come Anfiossi e Ascidi, nelle prime fasi della vita fetale, anteriormente all'apertura anale dell'intestino, un largo frammento di questo si invagina verso la regione caudale dove stanno associati intestino e tubo nervoso del primitivo canale neuro-enterico: ultimamente His e Fal hanno riscontrato lo stesso reperto in un embrione umano di un mese. A detta dell'A. l'intestino riscontrato potrebbe essere un tratto di intestino postanale incluso nel teratoma. Concludendo l'A. dice

che il teratoma sacrale è una formazione fetale interpretabile come una rudimentale gemellatura inclusa nel portatore.

Alla teoria parassitaria o della inclusione si contrappone la teoria partenogenetica sostenuta da Boseaus e da Buchner i quali sostengono questa concezione basandosi sulle ricerche di Dantschkoff secondo il quale le cellule sessuali che sono preformate nell'abbozzo cefalico dell'embrione, appena si forma il sistema vasale primitivo, vengono trasportate per via sanguigna sotto l'epitelio celomatico per cui può darsi che di queste cellule originarie ne residui qualcuna in diversi distretti dell'organismo come cellula smarrita. Queste cellule primordiali smarrite potrebbero essere stimolate allo sviluppo partenogenetico per il fatto di essere accolte nel contesto di tessuti nei quali si espongono ad influenze per le quali non erano state costruite.

Degna di attenzione per il largo stuolo di fautori e per il presupposto che la anima è la teoria che si appoggia alle conoscenze moderne degli organizzatori embrionali.

Spemann e Mangold in esperienze condotte su alcuni anfibi videro che se nello stadio di gastrula di questi esseri si preleva un frammento di labbro di blastoporo e lo si innesta nel blastocele di un altro embrione questo frammento innestato induce nella nuova sede la formazione di una placca neurale a spese dell'ectoderma e in seguito di una corda dorsale a spese del mesoderma, formazioni queste che normalmente non traggono origine da quella superficie di embrione in cui era stato operato l'innesto. Il frammento di blastoporo assume quindi un'influenza organizzatrice sulla superficie embrionale colla quale è stato messo a contatto e in questa induce delle modificazioni che la normale evoluzione genetica non avrebbe mai determinato. Perchè tutto questo sia possibile il tessuto *indotto* deve essere capace di una necessaria attitudine ad evolvere - *competenza* - sotto lo stimolo dell'organizzatore, verso formazioni per le quali non era fisiologicamente deputato.

La natura di questi organizzatori è incerta ed è stata supposta ora una struttura di tipo sterinico, ora di tipo nucleinico, ora (Needham) di tipo glico-lipo-protidico.

Lo stesso Needham afferma che nell'embrione vi è una vera gerarchia di organizzatori e questo lo deduce dal fatto che una struttura indotta agisce inducendo nuove strutture, non in modo disordinato, ma ordinatamente in un *campo di individuazione* in modo che i vari tessuti si ingranano secondo un piano organico e finalistico. Ora, per i sostenitori di questa teoria embriologica, l'aspetto dei teratomi è sovrapponibile alla disordinata commistione di tessuti che viene a crearsi

quando in un embrione è sconvolto il campo di individuazione che deve controllare e dirigere l'azione inducente degli organizzatori: in più, secondo Needham, nella genesi dei teratomi, non si tratta solo di quello che si è detto, ma, e forse in maggior misura, di una vera e propria irregolarità di risposta dei tessuti, legata alla loro competenza, che nello sviluppo normale agisce in determinati periodi e che in questi casi, per indebita persistenza, rappresenterebbe il motivo dominante degli squilibri tissutali.

Secondo Rondoni, che inoltre avanza una personale concezione a proposito dei teratomi sacrococcigei, entrambe le teorie enunciate sono degne di essere considerate ed anzi è possibile che i diversi fattori genetici si intreccino fra loro e costituiscano un unico elemento determinante. La teoria di Rondoni prende lo spunto da osservazioni di embriologia sperimentale condotte da numerosi ricercatori su uova di anfibi, secondo le quali, se si privano uova fecondate del sacco vitellino e si immergono poi in soluzioni ipertoniche per aggiunta di sali diversi, queste vanno incontro ad una evoluzione non normale in quanto viene disturbato quel meccanismo evolutivo della blastula per il quale questa dà origine alla gastrula o larva intestinale per cui, da una sfera cava a pareti semplici si forma un germe caliciforme a pareti doppie, la gastrula cioè, che comunica col mondo esterno mediante un'apertura detta blastoporo o bocca primitiva.

L'anormalità di questo processo di gastrulazione consiste, secondo Rondoni, nel fatto che invece di una invaginazione si ha una estroflessione per cui i foglietti germinali che dovrebbero risultare addossati si trovano invece distanti fra loro, per cui nel successivo sviluppo si instaura una caotica mescolanza di tessuto.

Rondoni ritiene che qualcosa di simile possa verificarsi nel campo dei teratomi e che una esogastrulazione possa stare alla base di questi processi: in definitiva egli dà una spiegazione particolareggiata di un fenomeno da altri più semplicemente interpretato come una deviazione dello sviluppo embrionario.

Come si vede però le varie concezioni che oggi cercano di spiegare il difficile problema non poggiano su reali dati di fatto e pertanto hanno solo il valore di teorie e di congetture.

La localizzazione sacro-coccigea dei teratomi è relativamente frequente come attestano le statistiche raccolte da Di Gaetano, Zampa e Mignani.

Predominano nel sesso femminile (in media con un rapporto 4/1) e per lo più sono manifesti alla nascita. Meno frequentemente si rendono evidenti alla pubertà o nell'età adulta.

Per le esigenze dello studio clinico ci sembra utile la classificazione proposta da Zampa:

1° gruppo: teratomi peduncolati:

- a) a sviluppo inferiore con peduncolo impiantato sul coccige anteriormente o posteriormente o su entrambe le faccie;
- b) a sviluppo nettamente anteriore;
- c) teratomi peduncolati inferiori che si continuano a bisaccia nell'interno della pelvi al davanti del sacro;

2° gruppo: teratomi sessili a sviluppo prevalentemente inferiore o posteriore;

3° gruppo: teratomi sessili a impianto presacrale:

- b) formanti sporgenza sul perineo, sulla linea mediana o da un lato, nella loggia ischiorettale;
- b) a evoluzione intrapelvica verso la cavità addominale;

4° gruppo: teratomi associati a spina bifida sacrale anteriore, in genere presacrali, più raramente infero o retro sacrali;

5° gruppo: teratomi complicati:

- a) da infezioni, necrosi, tumori;
- b) da segni di compressione sul retto, vescica, vasi pelvici, plessi nervosi sacrale e lombare.

La sintomatologia clinica dei teratomi sacro-coccigei si riassume per lo più nel reperto locale della malformazione e sui fatti compressivi che la massa può esercitare sugli organi pelvici a seconda della sua sede e del suo sviluppo.

La diagnosi non poggia su elementi patognomonic, a meno che il teratoma non sia sede di movimenti riferibili a contrazioni di masse muscolari appartenenti alla tumefazione (Virchow, Treves, Ahlfeld), o non sia possibile apprezzare palpatoriamente la presenza di formazioni ossee o cartilaginee o abbozzi di arti.

Frequentemente si possono associare al teratoma altre malformazioni, quali spina bifida (Virchow, Lopez, Simmonds, Stewart), meningocele, ed in questi casi si avranno lesioni nervose dimostrate da paralisi degli arti inferiori, disturbi sfinterici, disturbi della sensibilità. Per la diagnosi differenziale col meningocele vale il reperto palpatorio che permette di distinguere la massa cistica o tumorale a volume e consi-

stenza costante del teratoma, dalla massa fluttuante e a tensione variabile durante il pianto o gli sforzi del meningocele. E' anche importante nel caso del meningocele il rilievo di disturbi che la pressione sulla massa può determinare sul sistema nervoso centrale per aumento della tensione endocranica.

La terapia del teratoma sacro-coccigeo è esclusivamente chirurgica e deve essere attuata tempestivamente, tenendo conto però che nei piccoli bambini, data la loro scarsissima resistenza al trauma operatorio, è preferibile evitare l'intervento nei primi sei mesi di vita, a meno che circostanze particolari (compressione sugli organi pelvici, minacce di necrosi, fenomeni infiammatori) non lo rendano indifferibile.

#### CONSIDERAZIONI E CONCLUSIONI

Le considerazioni sul caso di nostra osservazione riguardano la etiopatogenesi e l'inquadramento nosologico.

In tema di etiologia non si può fare nessuna affermazione e i pareri di alcuni sostenitori di una causa ereditaria (Briziarielli, Rùbsaamen, Leder, Hichey e Layton) non possono essere naturalmente accettati perchè solo basati su vaghe considerazioni che per lo più riguardano il riscontro in alcuni ascendenti di portatori di teratoma, di malformazioni di tipo diverso: esiste sì un'indicazione, ma a nostro avviso, per lo meno finora, priva di reale valore.

La nostra osservazione non consente pertanto di portare alcun chiarimento ai quesiti etiologici propri di queste e di tutte le osservazioni similari.

Anche per quanto riguarda la patogenesi non ci sono validi argomenti per appoggiare una o l'altra delle varie ipotesi che abbiamo riportato, ne il reperto di ghiandole intestinali di tipo mucoso può essere ritenuto sufficiente ad omologare il nostro caso agli enterocistomi di Middeldorpf, riferendone l'insorgenza ad inclusioni e persistenza nel sacro-coccige dell'intestino postnatale. La commistione stessa di tessuti caratteristica dell'osservazione (tessuto nervoso, osteo-cartilagineo, muscolare striato, adiposo, oltre che il riscontro delle numerose ghiandole mucose intestinali) convince piuttosto per una origine di essa in rapporto ad una malformazione complessa e ne giustifica l'omologazione ai teratomi trifillici più che non agli enterocistomi: questo anche se il carattere istologicamente più significativo, quello cioè rappresentato dalle ghiandole mucose intestinali, potrebbe indurci ad un accostamento a queste ultime forme.

Stante l'abbastanza frequente riscontro in certi di questi teratomi di ghiandole intestinali, quale componente possibile ma non obbligatoria (vedi ad es. il caso di Briziarli), potrebbe essere presa in considerazione la necessità di una classificazione a parte di simili casi. La recente classificazione proposta dal Mignani fra i tumori della regione sacro-coccigea considera:

- a) tumori dei tessuti normali del sacro;
- b) tumori dei tessuti derivati da inclusioni embrionali;
- c) tumori dei tessuti in rapporto col sacro;

lo stesso A. inoltre sottoscrive la seguente classificazione fissata da Schawalde:

- 1) Pygopagus, in cui si ritrovano parti di un organismo più o meno sviluppato;
- 2) parassiti sacrali, in cui sono riconoscibili parti di organo o organi ben conformati;
- 3) teratomi sacrali, contenenti vari tipi di tessuto derivati da i tre foglietti embrionali;
- 4) teratomi contenenti i derivati di due foglietti embrionali.

A questi ultimi gruppi (3-4) vanno ascritte le formazioni rappresentate da masse costituite da cellule nervose, neuroglia, epiteli, tessuti di tipo intestinale e derivati in genere da tutti i tre foglietti embrionali: il nostro caso va quindi incluso in questo gruppo.

Secondo il Mignani la questione fra teratomi e tumori di Middeldorpf potrebbe essere risolta comprendendo fra i teratomi i derivati dai tre foglietti embrionali, mentre i tumori di Middeldorpf appartenerebbero ad un gruppo da collegare con persistenze di parti più sviluppate dell'embrione, normalmente però destinate all'involuzione (placca neurale, canale neuro-enterico, noto-cordale e intestino postanale) delle quali essi sarebbero una particolare espressione, in quanto analoga istogenesi va riconosciuta ad altri quadri come il cordoma, l'ependimoma, il lipoma caudale.

Questo gruppo è anche abbastanza numeroso (410 casi riportati in tutta la letteratura) ma per ora la sola osservazione del Middeldorpf resta l'unica veramente catalogabile come enterocistoma.

Non ci pare quindi legittimo intendere il caso di nostra osservazione come meritevole di una distinzione classatoria: defitane da un punto di vista istopatogenetico l'appartenenza ai teratomi, e sottolineati i dati che ne impediscono l'iscrizione ai veri enterocistomi, ci pare solo opportuno sottolineare il dato che i teratomi della regione

sacro-coccigea possono con certa frequenza presentare tali particolari aspetti, con gradualità di quadri da teratomi a scarsa componente enterica fino a quelli a notevole o prevalente componente enterica.

\*\*\*

Dall'esame della letteratura e dallo studio del caso personale osservato riteniamo di trarre le seguenti conclusioni:

1) i teratomi sacro-coccigei sono un'entità nosologica di relativamente frequente riscontro. Essi sono da considerare non come tumori ma come malformazioni o disontogenie di tessuto nel senso di Radaelli, in quanto mancano degli attributi tipici dei tumori;

2) parassiti sacrali, in cui sono riconoscibili parti di organo o blastomatoso e realizzare così il quadro di un vero tumore acquisito su base disontogenetica;

3) nella struttura istologica del teratoma la prevalenza di un determinato tipo di tessuto può determinare quadri particolari quali si realizzano nei cosiddetti tumori di Middeldorpf.

Il nostro caso, nonostante la notevole quota di ghiandole intestinali, per la presenza contemporanea di molteplici tessuti derivati da i tre foglietti embrionali, non può essere ascritto a questo tipo di tumori ed è pertanto da classificare quale teratoma trifillico a prevalente componente enterica.

#### RIASSUNTO

Gli AA. descrivono un caso di teratoma sacro-coccigeo, ne discutono la etiopatogenesi e l'inquadramento nosografico e concludono considerandolo come una disontogenia di tessuto, di genesi trifillica e a prevalente quota enterica.

#### RESUMÉ

Les Auteurs décrivent un cas de tératome sacro-coccygien dont ils discutent l'étiopathogénie et l'encadrement nosographique. Ils le considèrent, en conclusion, comme une disontogénie tissulaire d'origine ecto-mésodermique, avec prépondérance de l'ectoderme.

#### SUMMARY

The Authors describe a case of sacro-coccigeal teratoma. They discuss the etiology, pathogenesis and nosography of this malformation and conclude considering it as a dysontogenia of ecto-meso entodermic tissue prevalently entodermic.



## ZUSAMMENFASSUNG

Verff. beschreiben einen Fall eines Kreuz-Steissbeinteratoms, besprechen seine Pathogenese und seine nosographische Eingliederung und kommen zum Schluss, dass es als eine Gewebs-Dysontogenie angesehen werden muss, deren Ursprung auf das Ekto-, Meso- und Entoderm, mit Vorwiegen der Entodermkomponente, zurückzuführen ist.

## BIBLIOGRAFIA

- 1) BALDERI G., SILINGARDI C.: Boll. Soc. Med. Chir. Modena, 55, 2, 89, 1955. 2) BRIZIARIELLI G.: Lav. Ist. Anat. Ist. Pat. Perugia, 13, 2, 169, 1953.
- 3) CARRILLO N.: Rass. Int. Clin. Ter., 33, 6, 183, 1953. 4) GIORDANO A.: Ree. Progr. in Medie., 15, 3, 317, 1953. 5) GIORDANO A.: Bollett. di Oncol., 27, 6, 611, 1953.
- 6) HAMANT A., CORNIL L., MOSINGER M.: Ann. d'Anat. Pathol., 6, 9, 1924, 1929. 7) HACKEY R. L. and LAYTON J. H.: Cancer, 7, 5, 1031, 1954.
- 8) LEVI G.: Arch. Ital. Anat. Ist. Pat., 1, 1, 55, 1930. 9) LOCATELLI L.: Folia Hered. et Path., 4, 2, 139, 1955. 10) MIDDELDORPF K.: Virchows Arch., 101, 37, 1885. 11) MIGNANI E.: Arch. De Vecchi, 14, 3, 839, 1950.
- 12) NICHOLSON J.: Journal of Path. and Bact., 32, 365, 1929. 13) NICHOLSON J.: Journal of Path. and Bact., 34, 711, 1931. 14) RóBSAAMEN H., LEDER O.: Beitr. Path. Anat., 115, 2, 348, 1955.
- 15) SAWYER K. O., ORR R. E., BASKIN M. J.: Am. Surgeon, 19, 463, 1953. Ampia bibliografia sull'argomento nei lavori di BRIZIARIELLI e MIGNANI.