症例報告

CA19-9産生脾嚢胞に対して腹腔鏡下天蓋切除術を施行した1例

兵庫医科大学外科¹⁾, 同病理部²⁾

鈴木 和大¹⁾ 飯室 勇二¹⁾ 栗本 亜美¹⁾ 平野 公通¹⁾
岡田 敏弘¹⁾ 麻野 泰包¹⁾ 鳥井 郁子²⁾ 辻村 亨²⁾
藤元 治朗¹⁾

内容要旨

症例は32歳の女性で、上腹部痛を主訴に近医受診。脾嚢胞を指摘され加療目的に当院入院となった。腹部CT検査で脾臓に境界明瞭で内部均一な、8 cm大の嚢胞を認めた。また血液検査ではCA19-9は50.5U/mlと上昇を認めたが、画像上は他に悪性所見を認めなかった。以上よりCA19-9産生脾嚢胞と診断し、腹腔鏡下天蓋切除術を施行した。嚢胞内容は茶褐色で、内容液中のCA19-9は2,168,500U/mlと高値であった。病理組織学的検査で真性脾嚢胞と診断した。術後は血清CA19-9が45.9U/mlと低下した。術後は特変なく経過し、第8病日に退院。術後3カ月の現在、再発は認めていない。比較的稀なCA19-9産生脾嚢胞に対し腹腔鏡下天蓋切除術を施行した1例を経験したので報告する。

索引用語：脾嚢胞，CA19-9，腹腔鏡下天蓋切除術

はじめに

近年、脾嚢胞に対して脾機能温存の点から腹腔鏡下天蓋切除術を行ったとの報告例が散見される。今回われわれはCA19-9産生脾嚢胞に対して、腹腔鏡下天蓋切除術を施行した1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

症 例：32歳，女性。

主 訴：上腹部痛。

既往歴：腹部外傷の既往なし。その他，特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：3カ月前より時々上腹部痛が出現したため近医を受診。精査にて脾嚢胞を指摘されたため加療目的に当院紹介となった。

入院時現症：身長163cm，体重47kg。眼球・眼

瞼結膜に貧血，黄染認めず。腹部は平坦・軟であり，圧痛は認めず，腫瘤は触知しなかった。

入院時検査所見：血液生化学検査上，明らかな異常値は認めなかった。腫瘍マーカーはCEA 0.3ng/mlと正常範囲内であったが，CA19-9は50.5U/mlと上昇を認めた。

腹部超音波検査所見：脾臓内に脾門部を中心とする8 cm大の嚢胞を認めた。境界明瞭，辺縁平滑であり，内部エコーはほぼ均一で，隔壁や壁在結節は認めなかった (**Fig. 1**)。

腹部CT検査所見：脾臓内に脾門部を中心とする8 cm大の単房性で内部均一な嚢胞性病変を認めた。壁在結節は認めず，嚢胞壁の造影効果は認めなかった (**Fig. 2**)。

上部消化管内視鏡検査では，胃体上部大彎側に壁外性の圧排を認めるも，その他に上腹部痛の原因となる所見は認めなかった。MRI検査は閉所恐怖症で施行できなかった。

以上の所見より脾嚢胞と診断した。血清CA19-9が高値であるも他に明らかな病変を認めないため，CA19-9産生脾嚢胞と考え腹腔鏡下天蓋切除術を施

受付：2014年9月18日，採用：2014年12月7日

連絡先 鈴木和大

〒663-8501 兵庫県西宮市武庫川町1-1

兵庫医科大学外科

Fig. 1 Abdominal ultrasonography revealed a cystic lesion with a clear boundary in the spleen.

Fig. 2 Abdominal CT revealed well defined and homogeneous cystic lesion measuring 8cm in diameter in the spleen.

Fig. 3 Intraoperative findings.

a: Overview of the splenic cyst when laparoscopy was inserted to the intra-abdominal cavity (splenic cyst: arrows).

b: A post laparoscopic dome resection was performed.

a|b

Fig. 4 The histopathological diagnosis was true cyst (HE staining×200).

行することとした。

手術所見：全身麻酔下，体位を右半側臥位とし

た。臍直上に12mmのカメラポートを挿入し，上腹部に5mm，左側腹部に12mmのワーキングポートを挿入し手術を開始した。腹腔内検索すると脾臓の腹側に張り出した嚢胞を認めた (**Fig. 3a**)。まず嚢胞内容を吸引し，細胞診に提出するも明らかな悪性細胞は認めないとの結果であった。嚢胞内容液のCA19-9は2,168,500U/mlであった。続いて嚢胞を十分に開窓するため一部脾実質を合併切除する形で嚢胞壁の切離予定線を設定し，LigaSureおよびLCSを用いて切離した (**Fig. 3b**)。手術時間は123分，出血量は5mlであった。

病理組織学的検査所見：嚢胞壁は一部上皮に被覆されており，真性脾嚢胞と診断された。悪性所見は認めなかった (**Fig. 4**)。

Table 1 Reported cases of CA19-9 producing splenic cyst treated by laparoscopic dome resection in Japan

Case	Author	Year	Age	Sex	Chief complaint	Serum CA19-9 level	Tumor size (cm)	Operative time (min)	Intraoperative bleeding (ml)	Histology	Cystic fluid CA19-9 level	Outcome	Postoperative serum CA19-9
1	Tanaka ⁴⁾	2001	27	female	abdominal pain	330	11	53	a little	true cyst	3896000	3M with recurrence	35
2	Ogawa ⁵⁾	2004	24	female	abdominal discomfort	2	16	161	150	pseudocyst	19720	12M without recurrence	NR
3	Nakajima ⁶⁾	2004	19	male	abdominal pain	13.1	20	135	2	pseudocyst	342.8	10M without recurrence	ND
4	Mori ⁷⁾	2008	23	female	abdominal pain	414	13	205	80	true cyst	ND	no recurrence	12
5	Kawata ⁸⁾	2008	28	female	abdominal tumor	NR	12.6	180	20	true cyst	3733	1M without recurrence	ND
6	Kusama ⁹⁾	2010	27	female	abdominal pain	766	12	107	a little	pseudocyst	328000	no recurrence	decrease
7	Mizuguchi ¹⁰⁾	2011	29	female	abdominal pain	127.5	12	ND	ND	pseudocyst	374220	1M without recurrence	15.4
8	Nakagawa ¹¹⁾	2012	43	female	abdominal pain	775	14.7	85	a little	true cyst	550200	no recurrence	30
9	Iimuro ¹²⁾	2013	23	female	abdominal discomfort	88.3	14	186	a little	true cyst	33055	6M without recurrence	20.1
10	Our case	2014	32	female	abdominal pain	50.5	8	123	5	true cyst	2168500	3M without recurrence	45.9

ND: not described, NR: normal range

術後経過：術後の血液検査で血清CA19-9は45.9U/mlと低下していた。術後経過は良好で、第8病日に退院となった。術後3カ月の現在、術前の上腹部痛は消失し、脾嚢胞の再発も認めていない。

考 察

脾嚢胞は比較的稀な疾患であり、1829年にAndral¹⁾によって初めて報告された。本邦においては1890年に有田²⁾によって報告されて以来、画像診断の進歩に伴い報告例が増加してきている。脾嚢胞は真性脾嚢胞と仮性脾嚢胞に分類され、McClure³⁾の分類では真性嚢胞はさらに上皮性、内皮性、寄生虫性に分類され、仮性嚢胞は出血性、漿液性、炎症性などに分類される。また近年、脾嚢胞の中でもCA19-9を産生するものの報告が散見されつつある。CA19-9産生脾嚢胞に対して腹腔鏡下天蓋切除術を行った報告は、医学中央雑誌にて1990年～2014年6月までの期間で、「脾嚢胞」、「CA19-9」、「天蓋切除」をキーワードとして会議録を除いて検索したところ、自験例を含め10例の報告があった(**Table 1**)^{4)～12)}。平均年齢は27.5歳で、男女比は1：9で女性に多かった。主訴は腹痛が7例で最も多く、平均腫瘍径は13.3cmであった。術前に血

清CA19-9の上昇を認めたものは7例であった。平均手術時間は137分で、術中出血量の平均は51mlであった。嚢胞内容液中のCA19-9値は平均819,000U/mlであった。再発に関しては、10例中9例は無再発であったが1例に再発を認めていた。脾嚢胞に対して腹腔鏡下天蓋切除術を施行した後、再発は約20%と報告されており¹³⁾、再発予防に対してIimuroら¹²⁾は脾実質を一部切除し嚢胞壁を十分に開窓することを勧めている。自験例も嚢胞を十分に開窓するため、一部脾実質を合併切除する形で嚢胞壁の切除を行った。またCA19-9産生脾嚢胞10例の報告のうち、病理組織学的検査で真性嚢胞であったものは6例で、仮性嚢胞であったものは4例であった。真性嚢胞の場合、嚢胞壁の上皮細胞から嚢胞液が産生される可能性が高いことより、残存する嚢胞壁内腔を焼灼することや、大網を充填するなどの再発防止に努める必要があるとの報告もある¹³⁾。しかし術前画像診断にて真性嚢胞と仮性嚢胞の鑑別は困難と考えられ、また十分な嚢胞の開窓が再発予防に重要と考えられるため、治療方針に関しては、真性嚢胞と仮性嚢胞は同一でよいものと思われる。

血清CA19-9上昇の機序としては、嚢胞液が貯留

すると機械的に嚢胞被覆上皮が刺激されて嚢胞内のCA19-9の分泌が亢進し、徐々に嚢胞液中にCA19-9が蓄積、濃縮され、その後血中にCA19-9が逸脱するものと考えられる。自験例においても嚢胞液中のCA19-9は2,168,500U/mlと高値で、血清中のCA19-9も50.5U/mlと上昇していた。また術後、血清CA19-9は45.9U/mlと低下したが、その理由としては手術により嚢胞が開放されることで、嚢胞液の貯留による嚢胞被覆上皮の機械的刺激が消失し、またCA19-9が蓄積、濃縮された嚢胞液が除去されるため、嚢胞液中から血中に逸脱していたCA19-9が減少したためと考えられた。血清CA19-9が高値であるCA19-9産生脾嚢胞では、血清CA19-9の上昇をきたす他の悪性疾患の合併も考えて精査することが必要であるが、血清CA19-9の上昇をきたす他の悪性疾患の所見がなく、画像所見上も脾嚢胞が単房性の内部均一な病変で、嚢胞内に結節性病変などの悪性を疑う所見がない場合、手術治療として脾臓摘出術または天蓋切除術が選択されるものと考えられる。脾臓摘出術に関しては、脾臓がなくなることによって免疫力低下による敗血症や血小板増加による血栓症が発症する危険性がある¹¹⁾。一方、天蓋切除術に関しては、脾機能を温存できるメリットがある。実際の本邦におけるCA19-9産生脾嚢胞の報告例を見てみると、悪性所見を認めた報告はなかったが、血清CA19-9が高値の場合は完全に悪性を否定できないため、自験例では術中に嚢胞液の細胞診を行い、明らかな悪性細胞は認めないことを確認した後に、患者は若年者でもあり脾機能の温存をすべきと考えたため天蓋切除術を施行し、結果として術後の嚢胞壁の病理組織学的検査にても明らかな悪性所見は認めなかった。よって術前画像検査上、明らかな悪性所見を認めない血清CA19-9高値のCA19-9産生脾嚢胞に対しては術中に嚢胞液の細胞診などを行うことで、明らかな悪性疾患を否定した上で天蓋切除術を考慮してもよいと思われ、さらに腹腔鏡下で行うことにより低侵襲な術式になると考えられた。しかし残存している嚢胞壁に悪性病変がある可能

性も完全に否定できないため、術後の定期的な経過観察は必要であると思われた。

文 献

- 1) Andral G: *Precis d'Anatomie pathologique*. Vol.2, Gabon, Paris, 1829, p432
- 2) 有田久松：脾臓血嚢腫治験。順天堂医事研究会報告 89：905-911, 1890
- 3) McClure RD, Altemeier WA: Cysts of the spleen. *Ann Surg* 116:98-102, 1942
- 4) 田中弘之, 谷口正次, 山本 淳, 他：Laparoscopic Dome Resectionを施行後に再発した真性脾嚢胞の1例。外科 63：503-506, 2001
- 5) 小川淳宏, 丹羽英記, 山田 毅, 他：Laparoscopic dome resectionが奏効した巨大脾嚢胞の1例。手術 58：281-284, 2004
- 6) 中嶋 潤, 佐々木章, 旭 博史, 他：腹腔鏡下嚢胞天蓋切除を施行した脾嚢胞の1例。手術 58：1875-1878, 2004
- 7) 森洋一郎, 桑原義之, 篠田憲幸, 他：Laparoscopic dome resectionが奏効したCA19-9産生脾嚢胞の1例。日臨外会誌 69：171-174, 2008
- 8) 川田康誠, 木村正美, 堀野 敬, 他：腹腔鏡下嚢胞天蓋切除術を施行した、嚢胞液内CA19-9が高値であった巨大脾嚢胞の1例。臨外 63：1277-1279, 2008
- 9) 草間 啓, 宗像康博, 袖山治嗣, 他：腹腔鏡下天蓋切除術を施行したCA19-9産生性脾嚢胞の1例。日鏡外会誌 15：349-354, 2010
- 10) 水口 徹, 中村幸雄, 太田盛道, 他：天蓋切除術を施行したCA19-9高値脾嚢胞（径12cm）の1例。日臨外会誌 73：982-987, 2012
- 11) 中川国利, 小林照忠, 鈴木幸正：腹腔鏡下天蓋切除術を施行したCA19-9産生脾嚢胞の1例。日外科系連会誌 37：1035-1039, 2012
- 12) Iimuro Y, Okada T, Sueoka H, et al: Laparoscopic management of giant splenic true cyst with partial splenectomy: a case report. *Asian J Endosc Surg* 6:226-230, 2013
- 13) 砂原正男, 倉内宣明, 鈴木伸作, 他：再発により2回の腹腔鏡下天蓋切除術を施行した真性脾嚢胞の1例。日臨外会誌 74：1694-1699, 2013

A Case of CA19-9 Producing Splenic Cyst Treated by Laparoscopic Dome Resection

Kazuhiro Suzumura¹⁾, Yuji Iimuro¹⁾, Ami Kurimoto¹⁾, Tadamichi Hirano¹⁾,
Toshihiro Okada¹⁾, Yasukane Asano¹⁾, Ikuko Torii²⁾, Tohru Tsujimura²⁾
and Jiro Fujimoto¹⁾

Departments of Surgery¹⁾ and Pathology²⁾, Hyogo College of Medicine

A 32-year-old woman had been seen at another hospital due to the onset of upper abdominal pain. The patient was thereafter transferred to our hospital with a preliminary diagnosis of splenic cyst. Abdominal CT revealed a well-defined and homogeneous cystic lesion measuring 8cm in diameter in the spleen, and the serum CA19-9 level was found to be elevated to 50.5U/ml. No apparent malignancy was identified by imaging, and therefore the final diagnosis was a CA19-9 producing splenic cyst and laparoscopic dome resection was thus performed. The cystic fluid was brownish, and the CA19-9 level in the cystic fluid was elevated to 2,168,500 U/ml. A histopathological diagnosis indicated it to be a true cyst. The serum CA19-9 level was found to decrease to 45.9U/ml after the operation. The patient's postoperative course was uneventful, and she was discharged from the hospital on the 8th postoperative day. She is currently doing well without any recurrence at 3 months after surgery. We herein describe a case of a CA19-9 producing splenic cyst that was successfully treated by laparoscopic dome resection.

Key words: splenic cyst, CA19-9, laparoscopic dome resection