症例報告

膵管狭窄を伴った膵漿液性嚢胞腺腫の1例

犬山中央病院外科

山中 秀高 小野 要 佐藤 達郎 瀬古 浩

膵漿液性嚢胞腺腫は良性腫瘍で膵管浸潤はないが圧排により狭窄を来すものがあり、悪性腫瘍との鑑別が困難な場合がある。今回、我々は膵管狭窄を来した1例を経験したので報告する。症例は55歳の女性で、近医より食思不振と高アミラーゼおよび高CEA血症を指摘され受診した。血液検査成績でAMY 798IU/l, CEA 8.4ng/mlと高値を認めた。腹部CTおよびMRI所見で径1cm大の膵体部腫瘤を認め、ERCP所見で腫瘤部の膵管狭窄を認めた。腹部血管造影検査所見で異常はなかった。膵体部腫瘍と診断し、膵癌も否定できず、脾合併尾側膵切除術を施行した。摘出標本上、漿液性小嚢胞を伴う10×12mm大の白色充実性腫瘍で、病理組織で膵管を圧排狭窄するが浸潤はなく、漿液性嚢胞腺腫と診断された。狭窄例は非狭窄例より膵頭体部に多く随伴性膵炎を伴うため、若年で腫瘍径が小さいうちに発見されるが、質的診断が困難で術前に悪性と診断されるものが多かった。

はじめに

膵漿液性嚢胞腺腫は良性腫瘍で膵管浸潤はないが腫瘍の圧排により膵管狭窄を来すものがあり、各種画像診断の進歩した現在でも悪性腫瘍との鑑別が困難な場合がある。今回、我々は膵管狭窄を来した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：55歳、女性

主訴：食思不振

家族歴：特記事項なし。

既往歴：高血圧症にて内服加療中。1年前、内視鏡下大腸ポリープ切除術。

飲酒歴：なし。

現病歴：食思不振で近医受診し、高アミラーゼおよび高CEA血症を指摘され来院した。

来院時現症：眼瞼および眼球結膜に貧血、黄疸なし。腹部は平坦、軟で肝臓、脾臓、腫瘤など触知しなかった。

血液検査成績：白血球増加とAMY, CEA, CRP

Table 1 Laboratory data

WBC	8,900 / μ l	FBS	81 mg/dl
RBC	467 $\times 10^4$ / μ l	BUN	13.3 mg/dl
Hb	15.1 g/dl	Cr	0.6 mg/dl
Ht	45.5 %	Na	142 mEq/l
Plt	171 $\times 10^3$ / μ l	K	4.2 mEq/l
		Cl	101 mEq/l
TP	6.8 g/dl	Ca	10.0 mg/dl
AST	23 IU/l	CRP	1.1 mg/dl
ALT	19 IU/l		
LDH	373 IU/l	CEA	8.4 ng/ml
ALP	234 IU/l	CA19-9	10.2 U/ml
r-GTP	21.4 IU/l	AFP	1.7 ng/ml
T-Bil	0.6 mg/dl	CA125	9.2 U/ml
AMY	798 IU/l		

の高値を認めた (Table 1)。

腹部US所見：膵体部に径1cm大の内部に小低エコーの散在する等エコー腫瘤を認めた (Fig. 1)。

腹部CT所見：膵体部に径1cm大の造影されない低吸収性腫瘤を認めた (Fig. 2)。

腹部MRI所見：膵体部にT1で低信号、T2で高信号を示す腫瘤を認めた (Fig. 3)。

ERCP所見：腹部CTで認めた腫瘤部の膵管に

Fig. 1 Abdominal US showed iso density mass about 1cm in diameter which contained small hypoechoic lesion at pancreatic body (↑).

Fig. 2 Abdominal CT showed low density mass about 1cm in diameter at pancreatic body (↓). The mass did not enhanced and showed irregular margin.

Fig. 3 MRI showed low intensity mass about 1cm in diameter at pancreatic body on T1 intensity and high intensity on T2 (↓).

狭窄を認めた。腫瘍と膵管の交通はなかった(**Fig. 4**)。

MRCP 所見：ERCP で認めた膵管狭窄部に高信号腫瘍を認めた (**Fig. 5**)。

腹部血管造影検査所見：動脈、門脈ともに圧排、不整、腫瘍濃染像などの異常はなかった。

上部内視鏡検査所見：異常は認めなかった。

下部内視鏡検査所見：直腸ポリープを認め、ポ

リペクトミーにて腺腫であった。

以上より、随伴性膵炎を伴う膵体部腫瘍と診断し、膵炎改善目的と膵癌を否定できず手術を施行した。

術中所見：膵体部に径 1cm 大の弾性硬の腫瘍を触知したが、膵被膜や周囲への浸潤、リンパ節腫大などは認めず、脾合併尾側膵切除術を施行した。

Fig. 4 ERCP showed major pancreatic duct stenosis at pancreatic body (↓).

Fig. 5 MRCP showed high intensity mass at pancreatic body located on major pancreatic duct stenosis where seen on ERCP.

Fig. 6 a : Pancreatography of resected specimen showed tapering of main pancreatic duct (↑). b, c: Resected specimen showed 10×12mm, white solid mass consisted by small ~ micro multilocular serous cysts. Main pancreatic duct can not detected at tumor.

摘出標本の膵管造影検査所見：滑らかな膵管狭窄を認めた(**Fig. 6a**)。腫瘍は造影されなかった。

摘出標本肉眼所見：10×12mm大、漿液性小嚢胞を伴う白色充実性、辺縁不明瞭な腫瘍で、腫瘍

部では膵管が同定できなかった(**Fig. 6b, c**)。

病理組織所見：核や細胞異型の少ない単層立方上皮に被覆された多嚢胞性腫瘍で、PAS染色陽性より漿液性嚢胞腺腫と確診した。膵管への浸潤は

Fig. 7 a: Tumor showed expansive growth and main pancreatic duct is compressed but patency ($\uparrow$). Tumor was consisted from multilocular serous cysts lined by cuboidal epithelial cells without atypism. b: Tumor cells contained PAS positive granules in cytoplasm.

なく、圧排により狭窄していた (Fig. 7a, b)。尾側膵に軽度の膵炎を認めた。

考 察

膵漿液性嚢胞腺腫はほとんどが小嚢胞性の良性腫瘍だが、腫瘍の圧排により膵管狭窄を来すことがある^{1)~7)}。今回、自験例も膵管狭窄があり腫瘍径も小さかったため、画像診断上、膵癌を否定できなかった。そこで1999年1月から2004年1月までの医学中央雑誌で、Key wordに膵と漿液性嚢胞を含む、で検索した自験例を含む本邦報告24例について膵管狭窄の有無（以後、狭窄例と非狭窄例とする）で分けて検討した（分割表分析による χ^2 検定、 $P<0.05$ で傾向あり、 $P<0.01$ で有意差

ありとした）。その結果、狭窄例では非狭窄例より高齢、随伴性膵炎を伴う、で有意差を、膵頭体部に多い、腫瘍径が小さい、術前に悪性と診断されるものが多い、で傾向を認めた (Table 2)。これらは、自験例同様に狭窄例では随伴性膵炎により症状が発現しやすいため、非狭窄例より腫瘍径が小さいうちに発見されるものと思われた⁸⁾⁹⁾。腫瘍発生部位に関しては尾部では膵管狭窄がとらえにくいと思われた。術前診断に関しては本疾患では通常、MRIで微小嚢胞の集族として描出され、狭窄例ではMRCPで壁不整のない滑らかな形で、尾側膵管の拡張は軽度であることが多い¹⁰⁾、自験例同様に狭窄例では腫瘍径が小さく、この場合、充実性腫瘍のように描出されることがあるため質的診断が困難で、さらに膵癌では膵管狭窄が特徴であるが、腫瘍径が小さい場合、壁の不整が軽度のものもあることが要因と思われた。

また、自験例では高CEA血症が認められたので腫瘍マーカーについてみると、今までに高CA19-9血症と高CA125血症を示した症例を各1例ずつ認めた¹¹⁾¹²⁾。高CA19-9血症例では年齢、性別などは本疾患に典型的で、膵管狭窄を伴っていた。しかし、腫瘍径は7cmと大きく、異型細胞を認めており、悪性化を示唆するものであった。高CA125血症例では若年男性で大嚢胞性腫瘍であり本疾患としては非典型的で、膵管非狭窄例であった。嚢胞内溶液のCA125も高値で、CA125染色やCEA染色陽性の腫瘍細胞の存在も確認されており、腫瘍による産生が示されていた。しかし、従来より本疾患では腫瘍マーカーは通常陰性で¹³⁾、自験例も腫瘍のCEA染色陰性で、術後も高CEA血症の持続があり腫瘍産生による高CEA血症ではなかった。

文 献

- 1) Compagno J, Oetel JE: Microcystic adenoma of the pancreas (glycogen-rich cystadenoma): a clinicopathological study of 34 cases. *Am J Clin Pathol* **69**: 289—298, 1978
- 2) 福山尚治, 工藤志津子, 江川新一ほか: 膵漿液性嚢胞腺腫の2切除例—本邦報告108例の臨床像と画像診断に関する考察—, *膵臓* **13**: 372—378, 1998
- 3) Fujiwara H, Ajiki T, Fukuoka K et al: Macrocys-

Table 2 Pancreatic serous cystadenoma — reported cases in Japan between January, 1999 and January, 2004

	Pancreatic duct stenosis	
	exist 9 cases (37.5%) (contained our case)	none 15 cases (62.5%)
Age (average)	48 ~ 77 (64.7) year old	31 ~ 84 (59.3) year old
Gender (male : female)	3 : 6	4 : 11
Portion		
head	5 (55.6%)	1 (6.7%)
body	3 (33.3%)	5 (33.3%)
tail	1 (11.1%)	8 (53.3%)
unchus	0	1 (6.7%)
Tumor size (average)	12 ~ 70 (33.6) mm	10 ~ 100 (51.5) mm
Complication of pancreatitis		
exist	4 (44.5%)	0
none	3 (33.3%)	14 (93.3%)
unclear	2 (22.2%)	1 (6.7%)
Preoperative diagnosis		
pancreatic cystic tumor		
benign		
serous cystadenoma	4 (44.5%)	2 (13.3%)
mucinous custadenoma	0	1 (6.7%)
cystic tumor	0	6 (40.0%)
malignancy		
cystadenocarcinoma	0	1 (6.7%)
Pancreatic carcinoma	3 (33.3%)	0
pancreatic endocrine tumor	1 (11.1%)	3 (20.0%)
Pancreatic tumor	1 (11.1%)	1 (6.7%)
Abdominal tumor	0	1 (6.7%)
Operation method		
PD *	4 (44.5%)	0
PpPD **	1 (11.1%)	1 (6.7%)
DP ***	3 (33.3%)	6 (40.0%)
DP + S ****	1 (11.1%)	4 (26.6%)
EN *****	0	3 (20.0%)
others	0	1 (6.7%)
Prognosis		
healthy survive	4 (44.5%)	9 (60.0%)
unclear	5 (55.5%)	6 (40.0%)

* : Pancreatoduodenectomy, ** : Pylorus preserving pancreatoduodenectomy

*** : Distal pancreatectomy, **** : DS + splenectomy, ***** : Enucleation of tumor

tic serous cystadenoma of the pancreas. J Hepatobiliary Pancreat Surg 7 : 92—96, 2000

- 4) 山口幸二, 岸伸正則, 中野賢二ほか: 膵漿液性嚢胞腫瘍(腺腫), 胆と膵 22 : 11—17, 2001
- 5) 山田卓也, 伊藤英夫, 角 泰宏ほか: 膵内分泌腫瘍との鑑別が困難であった膵漿液性嚢胞腺腫の1例. 日臨外会誌 62 : 2279—2283, 2001
- 6) 田中賢一, 金丸太一, 山本正博ほか: 胆道および主膵管狭窄を来した膵漿液性嚢胞腺腫の1症例. 日消病会誌 100 : 1229—1233, 2003

- 7) 上田順彦, 大場 大, 八木治雄ほか: 膵内分泌腫瘍と鑑別が困難であった膵漿液性嚢胞腺腫の1例. 臨外 58 : 1269—1272, 2003
- 8) 白湯義晴, 吉富摩美, 池袋浩二ほか: 閉塞性黄疸, 門脈への強固癒着を認めた膵漿液性嚢胞腺腫の1例. 日消外会誌 37 : 57—62, 2004
- 9) 毛利律生, 山本 滋, 青木理恵ほか: 術前診断に苦慮した膵漿液性嚢胞腺腫の1例. 広島医 56 : 503—507, 2003
- 10) 崔 仁煥, 有山 襄, 須山正文ほか: 嚢胞性膵腫

- 瘍における 3D-MRCP の有用性. 消内視鏡 9 : 39—44, 1997
- 11) 松原俊樹, 亀井克彦, 長谷川茂ほか : Atypical cell と focal perineural invasion を伴った膵漿液性嚢胞. 胆と膵 24 : 297—302, 2003
- 12) 齋藤素子, 島多勝夫, 増山喜一ほか : 大嚢胞型を呈した膵漿液性嚢胞腺腫の 1 例. 膵臓 15 : 513—519, 2000
- 13) 山口幸二, 岸伸正則, 中野賢二ほか : 膵漿液性嚢胞腫瘍 (腺腫). 胆と膵 22 : 11—17, 2001

Pancreatic Serous Cystadenoma with Pancreatic Duct Stenosis—A Case Report—

Hidetaka Yamanaka, Kaname Ono, Tatsuro Satoh and Hiroshi Seko
Department of Surgery, Inuyama Central Hospital

Pancreatic serous cystadenoma is benign and does not invade the pancreatic duct, but occasionally causes pancreatic stenosis by compression, making it sometimes difficult to discriminate from a malignant tumor. We report a case of this disease causing pancreatic duct stenosis. A 55-year-old woman reporting appetite loss and having serum amylase of 798IU/l and CEA of 8.4ng/ml was found in abdominal computed tomography and magnetic resonance image to have a 1cm pancreatic mass and endoscopic retrograde cholangiopancreatography showed pancreatic duct stenosis at the mass site. Abdominal angiography showed no abnormalities. Distal pancreatectomy with splenectomy was done based on a diagnosis of pancreatic tumor in which malignancy could not be denied. The resected specimen showed a 10×12mm white solid mass containing small microserous cysts and found microscopically to be serous cystadenoma. Most cases of this disease with pancreatic duct stenosis involve a tumor at the pancreatic head and body and smaller tumors as complicated pancreatitis, making malignancy difficult to diagnose.

Key words : pancreatic cystadenoma, pancreatic duct stenosis, pancreatitis

[Jpn J Gastroenterol Surg 38 : 1590—1595, 2005]

Reprint requests : Hidetaka Yamanaka Department of Surgery, Inuyama Central Hospital
6 Futagozuka, Goroumaru, Inuyama, 484-8511 JAPAN

Accepted : March 30, 2005