症 例

高 CA19-9血症を呈した脾嚢胞の1例

浜松医科大学第1外科

川 辺 昭 浩 木 村 泰 三 小 林 利 彦
伴 覚 数 井 暉 久

有隣厚生会富士病院外科

森 岡 幹 登

今回われわれは、高 CA19-9血症を呈した比較的稀な脾嚢胞の1切除例を経験したので報告する。症例は、38歳男性で胸部膨満感と便秘を主訴に来院し、腹腔内腫瘍の疑いで入院となった。入院時現症として、腹部膨満を軽度認めたが、腹部腫瘍は触知しなかった。腫瘍マーカーとして、CA19-9 1,666U/ml, CEA 5.5ng/ml と高値を示す以外、血液生化学検査に異常は認められなかった。腹部超音波検査および CT にて脾門部に約10 cm 径の嚢胞性病変が認められた。術中所見では、腫瘍は脾門部の脾背側に位置し強固に脾と癒着していたため、脾尾部+脾合併切除術が行われた。腫瘍の大きさは7×7×7cm で、嚢胞内 CA19-9は 24×10^4 U/ml 以上と異常高値を示した。組織学的に脾嚢胞と診断され、免疫染色では、CA19-9および CEA とともに嚢胞内上皮に陽性所見を認め、同部から血中への逸脱が疑われた。CA19-9は、術後10ヵ月には正常値となった。

索引用語：脾嚢胞, CA19-9

はじめに

従来、脾嚢胞は比較的稀な疾患とされていたが、画像診断の進歩にともない近年その報告例は増加している。今回、臨床的に高 CA19-9血症を呈した極めて稀な脾嚢胞の1切除例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：38歳、男性。

主訴：腹部膨満感、便秘。

既往歴：5歳時より知的障害を指摘され、19歳時には精神分裂病の診断を受け現在も内服治療中である。なお、腹部外傷の既往はない。

現病歴：1990年はじめ頃より、時々腹部膨満感や便秘を自覚していたが放置していた。1995年9月になって近医を受診し、腹部超音波検査で腹腔内腫瘍が疑われたため、10月20日精査加療目的で富士病院へ入院となった。

入院時現症：身長163cm、体重55kg、血圧100/60 mmHg、脈拍60/分、整。体温36.9°C。眼瞼結膜に貧血

なく、眼球結膜に黄疸なし。胸部に異常所見なく、腹部も軽度膨満を認める以外、明らかな腹部腫瘍などは触知しなかった。

入院時検査成績：末梢血および一般血液生化学検査では異常はみられなかったが、腫瘍マーカーとして CEA が5.5ng/ml (正常値2.5以下) と軽度高値を示し、CA19-9は1,666U/ml (正常値37以下) と異常高値であった。

腹部単純 X 線検査：便秘に伴う大腸内の便およびガスの貯留はみられたが、明らかな異常所見は認められなかった。

腹部超音波検査所見：左上腹部に最大径約10cm の嚢胞性病変が認められ、脾尾部・脾・左腎を圧排していた。なお、内部エコーは均一であるものの、微小点状エコーの存在が認められた (図1)。

腹部 CT 所見：脾尾部から脾門部にかけて、内部均一で被膜を有する嚢胞性病変が認められた (図2)。なお、他臓器に腫瘍性病変は認められず、腹腔内リンパ節の腫大もみられなかった。

以上の所見より脾または脾原発の嚢胞性病変と診断したが、破裂または嚢胞内出血の可能性及び悪性腫瘍

図1 腹部超音波検査所見：左上腹部に最大径10cmの嚢胞性病変が認められた。

図2 腹部 CT 所見：脾尾部から脾門部にかけて、内部均一で被膜を有する嚢胞性病変を認めた。

の存在も否定できないことから、1995年10月25日に手術が施行された。

手術所見：腫瘍は比較的厚めの被膜を有する嚢胞性病変であり、脾尾部の背側で、脾門部に接するように存在していた。なお、脾尾部は嚢胞によって腹側に圧排され、嚢胞壁と強く癒着していたため脾尾部＋脾合併切除術を施行した（図3）。

切除標本肉眼所見および嚢胞内容液の性状：嚢胞は大きさ7×7×7cmで厚さ約2mmの被膜を有し、内容液は茶褐色漿液性で脂肪成分を含んでいた。なお、内容液の生化学的検査ではAMY 29IU/ml、CA19-9 24×10^4 U/ml以上、CEA 1×10^4 ng/ml以上であった。

病理組織学的所見：嚢胞線維性被膜は、一層または一部多層の円柱上皮で裏打ちされており、その外側には圧排された脾組織の遺残が認められたため、脾嚢胞と診断された（図4）。なお、免疫染色にて嚢胞内上皮

図3 手術所見：腫瘍は脾尾部の背側で、脾門部に接して存在していた。脾尾部は腹側に圧排され著しく薄くなり、嚢胞壁と強固に癒着していた。

図4 病理組織学的所見：嚢胞壁は上皮が脱落した部分も少なかったが、一層または一部多層の円柱上皮で裏打ちされていた（HE染色×50）。

は、CA19-9およびCEAが陽性であり、同部位からの嚢胞内および血中への流入が高CA19-9血症の原因と考えられた。

術後経過は順調で、第16病日に軽快退院した。なお血清CA19-9値は、術後2カ月で66U/mlと著明に減少し、10カ月目には正常範囲内となった。また、CEA値も術後2カ月で正常値を示し、以後CA19-9・CEAともに再上昇を認めていない。

考 察

脾嚢胞は1829年に、Andral¹⁾が初めて報告し、本邦では1890年の有田²⁾の報告が第1例とされている。その後比較的稀な疾患と認識されていたが、近年画像診断の進歩とともにその報告例は急増し、1987年には櫻本³⁾が468例を集計している。脾嚢胞の分類として

表1 高 CA19-9血症を呈した脾嚢胞(本邦報告例)

No	報告者	年度	年齢	性	病理診断	最大径 cm	血清 CA19-9 U/ml	嚢胞内 CA19-9 U/ml	血清 CEA ng/ml	嚢胞内 CEA ng/ml
1	亀山ら	1986	33	女	類表皮嚢胞	14	85,000		17	990
2	中西ら	1989	35	女	類表皮嚢胞(多発性)		high	high		
3	望月ら	1990	27	女	真性嚢胞	小児頭大	1,040	24,000		32.2
4	松川ら	1990	14	女	真性嚢胞(多発性)	23	225	240,000 ↑		
5	美濃ら	1990	44	女	外傷性脾嚢胞	13	1,400			
6	田中ら	1991	24	男	類表皮嚢胞		3,751			
7	酒井ら	1991	49	女	真性嚢胞	22	240	24,000	1.0	
8	藤田ら	1993	24	男	類上皮嚢胞	17	13,834	5,933,118	2.7	500
9	島多ら	1993	9	女	類表皮嚢胞	10	960	10,000 ↑	1.9	630
10	山田ら	1994	20	女		7.5	544	240,000 ↑		9,660
11	渡井ら	1995	15	男	類表皮嚢腫	18	110	200,000		
12	石橋ら	1996	19	女	上皮性嚢胞	17	4,929	14,970,000	2.1	6,739.4
13	自験例	1997	38	男	上皮性嚢胞	7.0	1,666	240,000 ↑	5.5	10,000 ↑

は、McClure⁴⁾のものがよく用いられており、嚢胞内腔を覆う上皮細胞の有無により真性および仮性嚢胞に大別されている。しかし真性嚢胞において退行変性などにより内皮細胞を欠くことや⁵⁾、逆に仮性嚢胞であっても2次的に内被細胞が発生しえる⁶⁾ことから、真性と仮性を厳密に区別することは必ずしも容易ではないとする意見もある。

臨床症状としては左季肋部腫瘍の触知や、左季肋部痛、心窩部圧迫感など隣接臓器への圧迫症状を示すことが多い。血液検査成績として、高 CA19-9血症を伴うことは極めて稀であり、われわれが調べた限りで12例の報告がみられたにすぎない。本症例を含めた13例について表1にまとめた。年齢は、9～49歳(平均27.0歳)と比較的若年者に多く、男性4例、女性9例と女性に多い傾向がみられた。嚢胞の最大径は、7～23cm(平均14.9cm)であり、症状として特徴的なものはなかったが左上腹部痛(4例)、腹部腫瘍(4例)などが多くみられている。なお、組織学的には、真性嚢胞、特に類表皮嚢胞と診断されたものが多く認められた。また、血清 CA19-9に関しては110～85,000U/ml、嚢胞内 CA19-9については 1×10^4 ～ 1.497×10^4 U/mlとその数値は幅広く報告されている。

一般に、成人における CA19-9は膵管、胆管、胃、気管支、唾液腺、前立腺、大腸などの上皮細胞の表面に存在するとされているが、良性疾患全体での陽性率は、約5%位である。しかし、膵・胆管系の閉塞や胆汁うっ滞を伴う胆石症、胆管炎、膵炎などでは血清 CA19-9が数千を越す症例も報告されている⁷⁾。今回の様に脾嚢胞により CA19-9が上昇する機序に関して、島多ら⁸⁾は

近位臓器より中皮細胞が迷入・扁平上皮化生し、嚢胞内で分泌蓄積した CA19-9が血中へ逸脱すると推測している。実際、本邦報告例のうち嚢胞内の CA19-9が測定されている10例では、いずれも血中での異常高値を示しており、嚢胞摘出後血中 CA19-9は正常化している。これらの事実は、嚢胞内に蓄積した CA19-9が、血中の CA19-9上昇に深く関与していることを示唆する所見である。しかし、山田ら⁹⁾は嚢胞内の CA19-9は異常高値でありながら、血中の CA19-9は正常であった症例を報告しており、嚢胞内濃度と血中への逸脱程度は、必ずしも相関していない。また、CEA に関しては嚢胞内で高値を示した症例が7例あるものの、そのうち血中で高値を示したものは本症例を含め2例だけであり、嚢胞内 CEA 値の血中への反映は比較的低いものと考えられた。CA19-9と CEA の血中逸脱の程度に差が認められるが、その機序については不明である。

高 CA19-9血症を伴った13例のうち、病理組織学的に嚢胞内腔に上皮細胞が存在し、CA19-9に対する免疫染色が施行された症例(8例)ではすべて陽性所見が得られている。本症例では上皮が脱落した部分も少なくなかったが、残存する上皮細胞のほとんどで CA19-9および CEA 染色が陽性を示し、同部にて CA19-9・CEA が産生されていた可能性が極めて高いと考えられた。

一般に治療法としては、嚢胞内出血や破裂の危険性を考慮し摘脾術が行われていることが多い。しかし、若年者に対しては、免疫学的見地から脾部分切除または嚢胞摘出術が望ましいとの意見もある¹⁰⁾¹¹⁾。本症例では、嚢胞が脾門部に存在し、非常に薄くなった脾尾

部が嚢胞表面に広範に癒着していたこともあり脾尾部および脾の温存は困難と判断し脾尾部+脾合併切除術を施行した。

術後、血中 CA19-9 および CEA 値は正常域にまで下降したが、CA19-9 値が正常域になるまで約 10 カ月を要したのは、脾組織の圧排、挫滅等が関与していた可能性も考えられる。

結 語

今回われわれは、高 CA19-9血症を呈した脾嚢胞の 1 切除例を経験したので、本邦報告例を検討し、若干の文献的考察を加え報告した。

稿を終えるにあたり、病理学的御指導をいただいた第 1 病理、安見和彦博士に深く感謝いたします。

文 献

- 1) Andral G: *Precis d'anatomic 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, 1980
- 3) 櫻本 薫, 唐司則之, 天野穂高他: 脾リンパ管腫の

- 1 例. 千葉医学 63: 225-229, 1987
- 4) McClure RD, Altemeier WA: Cysts of the spleen. *Ann Surg* 116: 98-102, 1942
- 5) Fowler RH: Nonparasitic benign cystic tumors of the spleen. *Int Abst Surg* 96: 209-227, 1953
- 6) Denneen EV: Hemorrhagic cyst of the spleen. *Ann Surg* 116: 103-108, 1942
- 7) 小田桐恵美: CA19-9. 日臨 53: 719-722, 1995
- 8) 島多勝夫, 桐山誠一, 山下芳朗他: 血清 CA19-9 高値を呈した脾類表皮嚢胞の 1 例. 日消外会誌 26: 942-946, 1993
- 9) 山田 斉, 平松義文, 川口雄才他: CA19-9 産生性脾嚢胞の 1 例. 手術 50: 289-292, 1996
- 10) 小川吾一, 光吉 貢, 内田隆寿他: 脾部分切除術を行った脾嚢胞の 1 例. 日臨外医会誌 52: 650-656, 1991
- 11) 山野寿久, 宮出喜生, 三角俊毅他: 脾臓温存手術を行った脾嚢胞の 1 例. 日臨外医会誌 57: 3062-3066, 1996

A CASE OF SPLENIC CYST WITH HIGH SERUM CA19-9 LEVELS

Akihiro KAWABE, Taizo KIMURA, Toshihiko KOBAYASHI, Satoru BAN,
Teruhisa KAZUI and Mikito MORIOKA*

First Department of Surgery, Hamamatsu University School of Medicine

*Department of Surgery, Yurinkoseikai Fuji Hospital

We experienced a rare case of splenic cyst with a high serum CA19-9 level.

A 38-year-old man was admitted to the Fuji hospital, complaining of abdominal fullness and constipation. Preoperative blood examination showed a high level of serum CA19-9 (1666 U/ml). Ultrasonography and CT of the abdomen showed a large cystic tumor at the splenic hilus. Splenectomy and distal pancreatectomy were performed, as extensive adhesions were present. Intracystic CA19-9 was very high (above 24×10^4). On immunohistochemical staining with anti-CA19-9, the epithelium of the cyst showed a positive reaction. After the operation, the elevated serum CA19-9 decreased to normal range.