症 例

脾内へ伸展し脾嚢胞をも合併した脾貯留性嚢胞の1例

岡山大学第2外科

松本英男 平井隆二 植村忠宏 山野寿久
村上正和 太田徹哉 土井原博義 清水信義

脾貯留性嚢胞が脾に伸展し仮性嚢胞を形成、さらに脾嚢胞を合併し、嚢胞性脾腫瘍との鑑別を要した症例を経験したので報告する。

症例は47歳の男性で、慢性脾炎の経過中に嚢胞性脾腫瘍を疑われ当科紹介となった。腹部US, CT, MRIで脾尾部に13×12cmの壁は一部肥厚し、内部に隔壁様の充実性部分を認める嚢胞であった。ERPでは主脾管と嚢胞との交通は認めなかった。嚢胞性腫瘍を否定できず、脾体尾部・脾切除術を施行した。

組織学的には、脾と隣接した嚢胞壁に脾管上皮が残存しており貯留嚢胞と診断された。しかし、脾側の嚢胞壁は脾実質で構成され、被膜は認めなかった。脾貯留嚢胞が脾内へ仮性嚢胞を形成、さらに圧排による血行不全のため脾梗塞をおこし、この後に脾嚢胞が形成されたと考えられた。

索引用語：脾貯留嚢胞，脾仮性嚢胞，脾嚢胞

はじめに

近年、画像診断の発達とともに脾の嚢胞性疾患の発見は容易になり、鑑別診断技術は飛躍的に向上していると思われる¹⁾²⁾。しかしながら、臨床上の取り扱いに関しては、質的診断、治療方針に苦慮する場合も少なくない。脾内へ穿破し仮性嚢胞を形成し、さらに脾嚢胞を合併し、嚢胞性脾腫瘍との鑑別に苦慮した脾の貯留性嚢胞を経験したので、文献的考察を含めて報告する。

症 例

症例：47歳，男性。

主訴：上腹部不快感。

既往歴：平成元年より慢性脾炎。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成元年の急性脾炎発症時より再発を繰り返し、慢性脾炎へ移行し、近医にて治療を受けていた。平成7年10月に急性増悪をきたし、入院治療を受けたさい、脾尾部の嚢胞と血中CA19-9の上昇を認めたため当科紹介となった。

アルコール摂取：ビール2本/日

現症：身長167cm，体重57kg。貧血・黄疸を認めず、

表在リンパ節を触知せず。胸部理学所見に異常を認めなかった。腹部は平坦で軟。左上腹部に軽度の圧痛は認めるものの、腫瘤は触知しなかった。

入院時検査所見：炎症所見等は認めないものの、血中アミラーゼは533IU/l、血中CA19-9は260U/mlと上昇していた（表1）。

腹部超音波検査所見：脾管は嚢胞状に拡張し、脾尾部に13×12cmの内空が均一な low echoic lesion を認

表1 Laboratory data on admission

WBC	4,900 / μ l	s-AMY	533 IU/l
RBC	3.38×10^6 / μ l	Na	139 mmol/l
Hgb	11.0 g/dl	K	4.1 mmol/l
Hct	32.5 %	Cl	103 mmol/l
Plt	341×10^3 / μ l	Ca	8.5 mg/dl
T.P.	6.65 g/dl	Crea	0.46 mg/dl
Alb	3.63 g/dl	BUN	8.5 mg/dl
T. Bil	0.37 mg/dl	CRP	0 mg/dl
GOT	17 IU/l	CEA	3.26 ng/ml
GPT	10 IU/l	Span-1	68.9 U/ml
ALP	83 IU/l	DUPAN-II	156 U/ml
LAP	54 IU/l	CA19-9	260 U/ml
γ -GTP	28 IU/l		
CHE	129 IU/l		
LDH	245 IU/l		

1998年3月4日受付 1998年6月12日採用

めた。脾管との交通は明らかではなかった。嚢胞壁は一部肥厚し、隔壁様に内腔に隆起していた(図 1a, b)。

腹部 CT: 造影 CT にて、脾の萎縮と脾管の著明な拡張を認めた。脾尾部には13×12cm の嚢胞を認めた。嚢胞壁は一部肥厚し、内腔に突出する隆起を有し隔壁様に描出された。嚢胞内容はほぼ均一に low density を示した。脾は強く圧排されており脾内にも嚢胞を認めた(図 2, 図 3d)。

腹部 MRI: 嚢胞内容は T1強調像, T2強調像で共に high intensity を示した。脾尾部に13×12cm の嚢胞を認めた。CT と同様に嚢胞壁は肥厚しその内部に隔壁様の充実性部分を認めた(図 3a, b, c)。

ERP: 主脾管の嚢胞状拡張と一次分枝の拡張を認めたが、脾尾部の嚢胞との交通は描出されなかった(図 1c, d)。

血管造影: 脾動脈造影では、脾動脈は圧排・伸展されていたが、嚢胞壁に新生血管は認めず、壁の濃染も認めなかった。脾静脈は描出されず、左胃静脈などへの側副血行が発達していた(図 4)。

脾の嚢胞性腫瘍を否定できず、11月24日に脾体尾部

切除を施行した。

手術時所見: 脾は線維化・菲薄化が著しかった。嚢胞壁は厚く、周囲組織と癒着していたが浸潤はなかった。血管造影で認めた側副血行路を処理した後に、脾動静脈を処理、体部で切除を行った。脾静脈は開存しており圧迫による血流の途絶と考えられた。

摘出した嚢胞の大きさは12×10.5×6.5cm で、摘出後の脾管造影では嚢胞との交通は認めなかった(図 5a, c)。嚢胞内容は、600ml の濃緑色の液体で、amylase 106,500IU/l, CEA 28.1ng/ml, CA19-9 259,800U/ml であり、細菌培養は陰性であった。

摘出標本の冠状断では、嚢胞内に腫瘍性隆起は認めず、単房性であった。嚢胞内壁は脾頭側は黄白色で平滑だが、脾側は濃褐色の苔状物におおわれており、この境界部の頭側は脾実質が隔壁様に内腔に突出していた。この隔壁様突出部より脾側の嚢胞壁は脾が圧排・伸展された状態で構成しており、脾内にも最大2cm の嚢胞を3個認めた(図 5b, d)。

病理組織所見: 脾実質は線維化が著しく、脾頭側の嚢胞壁は脾実質が構成していた。この部の嚢胞上皮は、

図1 腹部超音波: a) 拡張した脾管と脾尾側の嚢胞を認めた。b) 嚢胞内に隔壁様構造物を認めた。c)d) ERP では嚢胞との交通は認めなかった。

図2 腹部 CT 嚢胞壁は一部肥厚し、内腔に突出する隆起を有し隔壁様に描出された。圧排された脾内には嚢胞を認めた (↓)。

図3 a) T_1 WI. c) T_2 WI 共に嚢胞内部は high intensity であった。b) Gadlinium- T_1 WI: 嚢胞壁は軽度造影された。d) 同位置の CT 像。

図4 a) 腹腔動脈造影：嚢胞壁に新生血管は認めず、壁の濃染も認めなかった。b) 脾静脈は描出されず、左胃静脈などへの側副血行が発達していた。

図5 a) 摘出標本。c) 摘出標本脾管造影。脾管と嚢胞の交通は認めなかった。b) 冠状断面。d) 冠状断面の拡大：(↓) 脾と嚢胞との境界部を示す。(↓) 脾内の嚢胞。

一部に脾管上皮細胞を残すのみでほぼ脱落しており、主脾管と近接し、周囲の脾実質内にも拡張した脾管が存在し、脾分泌液の貯留が認められた(図6a, c)。このことより、貯留嚢胞が起因したものであると考えられた。脾側の嚢胞壁は菲薄化した脾実質が構成しており(図6b)、脾嚢胞も散見された。

脾内の嚢胞周囲の脾実質には脾門部の血流障害からと推測される梗塞像が散見され、脾内の嚢胞も梗塞により形成されたと考えられた(図6d)。すなわち、慢性脾炎に合併した貯留嚢胞が脾内に穿破し仮性嚢胞を形成し、さらに脾門部の血流不全により脾嚢胞をも合併したと考えた。

図6 a) 脾側の嚢胞壁には一部に膵管上皮細胞を認めた。c) 周囲の脾実質内にも拡張した膵管が存在し、膵分泌液の貯留が認められた。b) 脾側の嚢胞壁は菲薄化した脾実質が構成しており、d) 脾内には脾嚢胞とともに梗塞巣を認めた。

考 察

脾の腫瘍性嚢胞の特徴として、Warshaw³⁾やAndrewら⁴⁾は、急性・慢性膵炎や胆石、アルコール多飲や外傷などの既往がないこと、画像上嚢胞壁の不整像、隔壁様構造や充実性部分があること、嚢胞壁に石灰化を認めるもの、ERCPで膵管との交通がないこと、血管造影で血流が豊富なことなどをあげている。

また中迫ら²⁾は、嚢胞性病変の最大径が3cm以上、かつ嚢胞内腔に隆起または隔壁の両方またはいずれか一方を指摘できれば腫瘍性病変の可能性が極めて高いと指摘している。

本症例は、嚢胞が大きく、膵管との交通を認めず、造影CTでエンハンスメントされる嚢胞壁の肥厚や隔壁様構造物を認めた⁵⁾⁶⁾ことより、嚢胞性脾腫瘍との鑑別に難渋し、脾体尾部切除と脾摘出を行った。しかし結果的に考えれば、基礎疾患に慢性膵炎があり、Dynamic CTや血管造影で新生血管の増生は認め

ず⁵⁾⁶⁾、また脾静脈が圧迫によって途絶していたことなどは腫瘍性病変として典型的ではなかった。

脾仮性嚢胞の脾への穿破・伸展については、本邦報告例でも散見される^{7)~9)}が、本症例では脾側の嚢胞壁には膵管上皮細胞が一部残存しており、嚢胞周囲の脾実質にも膵液の貯留した拡張した膵管を認めた。嚢胞と主膵管との交通はないものの、嚢胞内と交通があったかのように主膵管が近接しており、初期には交通があり、液体が貯留し嚢胞化したものと考えられた。その後も繰り返す膵炎のため、脾頭側の膵管が途絶し、貯留嚢胞が破綻して脾内に穿破し、仮性嚢胞を形成したものと思われた。画像上、中迫ら¹⁰⁾が指摘しているように、嚢胞壁は繰り返す炎症のため分厚く肥厚し、内腔へ突出した隔壁様構造物は仮性嚢胞の壁を構成する脾実質であったことが鑑別に迷う結果となった。

脾嚢胞については、脾内に梗塞巣が認められることから、脾門部が仮性嚢胞の形成による圧排のため嚢胞

が形成されたものと類推された。Boliver ら¹¹⁾は脾内嚢胞の発生機序を、①仮性嚢胞が直接脾内に穿破、②脾炎による脾酵素の脾血管および脾実質への直接作用、③異所性脾内組織の嚢胞形成、④脾炎による脾動脈の血栓形成のために生じた脾梗塞あるいは血腫の融解と述べており、本症例では脾門部の仮性嚢胞は①の機序、脾内の多発嚢胞は④の機序が考えられた。

嚢胞内容液について、CEA・CA19-9が高値のものは嚢胞腺腫や嚢胞腺癌といった悪性の嚢胞性疾患に頻度が高くその血清値と相関するという報告¹²⁾もあるが、本症例ではむしろ嚢胞内容のアミラーゼ値が高値¹³⁾であり仮性嚢胞を含めた炎症性嚢胞の性格を表していたのであろう。

超音波誘導下の経皮的ドレナージも考慮したが、腫瘍性病変の場合の播種³⁾という可能性も考えて細胞診をふくめて穿刺は行わなかった。結果的には空腸や胃との吻合で十分であったが、biopsy や frozen section による診断も腫瘍性病変との鑑別は難しいとされており^{3,5)}切除は妥当であったと考えている。

文 献

- 1) 黒田 慧, 杉山政則: 脾嚢胞性病変・疾患の臨床病理学的課題. 消外 15: 427—438, 1992
- 2) 中迫利明, 羽生富士夫, 今泉俊秀他: 脾嚢胞性疾患の鑑別診断. 胆と脾 11: 53—60, 1990
- 3) Warshaw AL, Compton CC, Lewandrowski K, et al: Cystic tumors of the pancreas. New

- clinical, radiologic and pathologic observation in 67 patients. Ann Surg 212: 432—445, 1990
- 4) Warshaw AL, Rutledge PL: Cystic tumors mistaken for pancreatic pseudocysts. Ann Surg 205: 393—398, 1987
- 5) 西野隆義, 土岐文武, 大井 至: 脾嚢胞性腫瘍—1. 消外 15: 1913—1921, 1992
- 6) 張 正和, 土岐文武, 中迫利明他: 脾嚢胞性腫瘍(2)—いわゆる粘液産生脾腫瘍—. 消外 15: 2183—2193, 1992
- 7) 豊田暢彦, 菅沢 章, 万木英一他: 脾内に穿通し、脾嚢胞を形成した脾嚢胞の1例. 外科診療 32: 1301—1304, 1990
- 8) 石部良平, 田中紘輝, 山田和彦他: 脾内に波及した脾仮性嚢胞の2手術治験例. 日消外会誌 25: 2421—2425, 1992
- 9) 佐藤公司, 村田貞史, 岡 敬三他: 脾内に進展したと考えられる脾仮性嚢胞の1例. 日臨外医会誌 55: 2655—2661, 1994
- 10) 中迫利明, 今泉俊秀, 原田信比古他: 脾嚢胞性疾患の良悪性鑑別診断. 外科 57: 760—766, 1995
- 11) Boliver JC, Lempke RE: Pancreatic pseudocyst of spleen. Ann Surg 179: 73—78, 1974
- 12) Tatuta M, Ishii H, Ichii M, et al: Values of Carcinoembryonic antigen, Elastase 1, and Carbohydrate antigen determinant in aspirated pancreatic cystic fluid in the diagnosis of cysts of the pancreas. Cancer 57: 1836—1839, 1986
- 13) 山中恒夫, 上野規男, 木村 健: 穿刺による脾嚢胞性疾患の動態診断. 胃と腸 25: 189—196, 1990

A CASE OF RETENSION CYST OF THE PANCREAS FORMING A PSEUDOCYST IN THE SPLEEN WITH SPLENIC CYST

Hideo MATSUMOTO, Ryuji HIRAI, Tadahiro UEMURA, Kotohisa YAMANO,
Masakazu MURAKAMI, Tetsuya OHTA, Hiroyoshi DOIHARA
and Nobuyoshi SHIMIZU

Second Department of Surgery, Okayama University, School of Medicine

We report a case of retention cyst of the pancreas extended to the spleen, and formed a pseudocyst there with splenic cyst. It was difficult to distinguish benign cyst from malignant cystic tumor; cystic adenoma or adenocarcinoma. A 47-year-old man was referred to the institute with a suspicion of pancreatic cystic tumor during the course of chronic pancreatitis. Abdominal ultrasonography, CT scan and magnetic resonance imaging revealed a cystic lesion on the pancreas tail, 13 × 12 cm in size. The wall of the cyst was thickened partly, and there was a solid part which looked like septums. ERP revealed the dilated main duct without communication to the cyst. We diagnosed the case as probable cystic neoplasm of the pancreas and performed a distal pancreatectomy and a splenectomy.

Histologically, ductal epitheliums of the pancreas remained partly on the cystic wall of the pancreas side so that the cystic lesion was diagnosed as retention cyst of the pancreas. But the wall of the cyst was consist of the splenic cell without capsule of the spleen. Further more, cysts were recognized in the spleen.

It is etiologically concluded that the retention cyst of pancreas formed the pseudocyst in the spleen and then splenic infarction occurred due to compression by the pancreatic cyst, causing the splenic cysts.