

膵嚢胞壁にラ島腫瘍を認めた1例

防衛医科大学校第2外科 (*同第1外科)

杉浦 芳章 島 伸吾 米川 甫 吉住 豊
千先 康二 尾形 利郎 初瀬 一夫*

PANCREAS CYST COMBINED WITH ISLET CELL TUMOR WITHIN ITS WALL, A CASE REPORT

Yoshiaki SUGIURA, Shingo SHIMA, Hajime YONEKAWA,
Yutaka YOSHIZUMI, Kouji SENSAKI, Toshiro OGATA
and Kazuo HATSUSE

Department of Surgery II, National Defence Medical College

索引用語：膵嚢胞，ラ島腫瘍

はじめに

膵嚢胞は Haward and Jordan¹⁾の分類によれば成因，病態によりおよそ20種類に細分化されている。最近仮性膵嚢胞壁の一部にラ島腫瘍を併発した症例を経験したので文献的考察を加え報告する。

症 例

25歳女子。主訴は左背部痛で昭和57年4月より特に食後に強く，胃部膨満感をともなっていた。近医で胃透視を受け二重造影で胃の後部に石灰化陰影を認めた(図1)。既往歴，家族歴には特記すべきことはない。

入院時現症としては左季肋部に鶏卵大の硬い腫瘤を触れ，表面は平滑で軽度の圧痛は認めたが可動性は乏しかった。

入院時検査所見：末梢血，肝機能，電解質，血清および尿中アミラーゼすべて正常であり血清 α -feto-protein (以下 α FP と略す) および carcinoembryonic antigen (以下 CEA と略す) 値も正常であった。

腹部 abdominal computed tomography (以下腹部CT と略す) では膵尾部に石灰化のある嚢胞を認め，内腔のCT値は血液より少し高い程度であった。他臓器には嚢胞は認めなかった(図2)。

超音波検査では表面石灰化をとまなう Tumor として描出されているが，内部は正常の膵より少しエコーレベルが低く均一で，膵尾部の石灰化をとまなう限局性の慢性膵炎が疑われた。

選択的腹腔動脈造影，上腸間膜動脈造影およびそれらの門脈相では腫瘍周囲の脈管の Stretch 以外は異常所見はなかった(図3)。

以上の検査所見より仮性膵嚢胞の術前診断で開腹手術を施行した。

手術所見：腹水，癒着なく網嚢を開くと膵尾部に鶏卵大の硬い腫瘤があり暗赤色を呈していた。他臓器には異常を認めず，脾および脾動静脈を温存し膵尾部切

図1 胃二重造影写真
胃の後部に石灰化陰影を認めた。

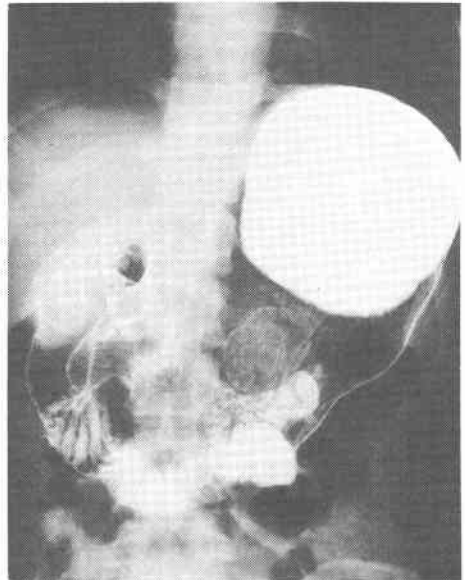


図2 腹部CT

膵尾部に石灰沈着を有する嚢胞を認め、内腔のCT値は血液より少し高い程度であった。

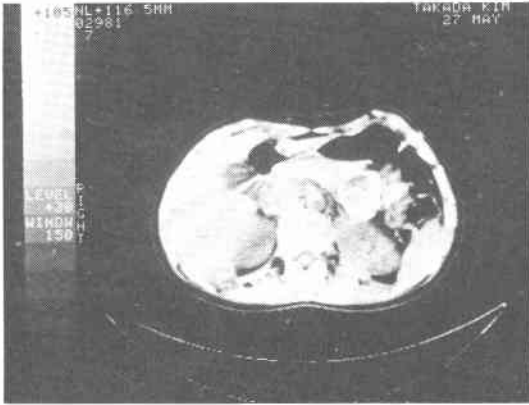


図3 選択的腹腔動脈造影

嚢胞周囲の血管のStretch以外は異常所見は認められない。

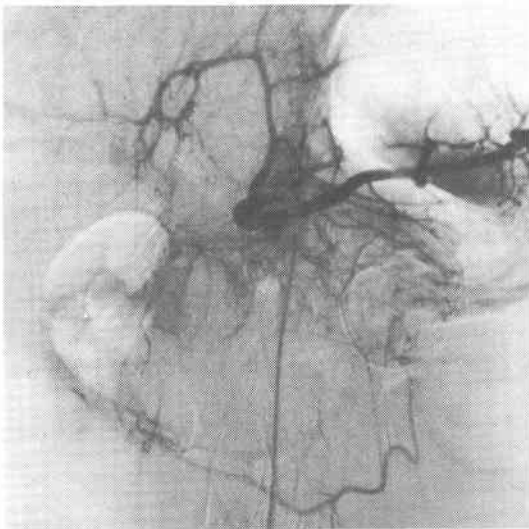


図4 切除標本断面

右側が膵尾部で嚢胞壁の一部に矢印で示す腫瘍が認められる。(1.0×0.5cm)

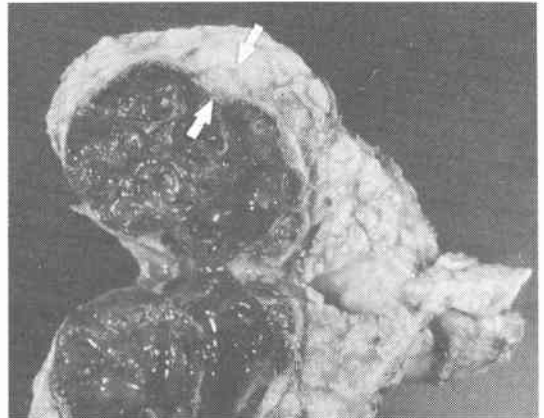


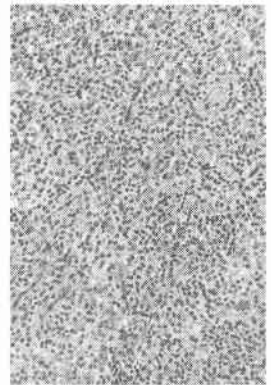
図5 組織像

弱拡大(×20) H-E染色

図4 矢印で示した腫瘍である。石灰化をともなう嚢胞壁内に古い出血をもたない存在する腫瘍(明調部分)と膵実質(暗調部分)

強拡大(×100) H-E染色

膵ラ氏島細胞と類似した腫瘍細胞の充実性増生



除術を施行した。

切除標本の肉眼的所見：暗赤色の4×4×3cmの腫瘍で、壁は石灰化をともない、内容はチョコレート様の古い凝血であった。断面では壁に接した膵尾部に1.0×0.5cmのやや白色調を帯びた部位が確認された(図4)。

組織学的所見：弱拡大では嚢胞内容はコレステリン結晶が散在する凝血で、壁は石灰化をともない線維組織から成り、壁の内面には上皮を認めず仮性膵嚢胞で

あった。さらに嚢胞壁の線維の中に腫瘍が認められ強拡大では比較的小さい円型の細胞より成る腫瘍で、一部神経線維周囲間に浸潤している部分も認めたが、全体としては膵実質との境界も明瞭で、被膜外へ浸潤している所見も認められなかった。 α 細胞、 β 細胞染色でも染らず、戻し電顕でも分泌顆粒の存在は証明されず非活動性ラ島腫をともなう仮性膵嚢胞と診断した(図5)。

表 1

症例	年齢	性	術前診断	診断根拠	手術	病		報告者	年次
						Macro	Micro		
1	61	♀	右季肋部・心窩部腫瘍	触診 十二指腸潰瘍穿孔手術時の生検	囊胞剔除 31日死 脾体尾, 脾剝	腫瘍の中心壊死が囊胞化したか	delta cell からなる islet cell tumor	Joshi ¹²⁾	1955
2	48	♂	左上腹部腫瘍	GIS	1) 囊胞空腸吻合 2) 脾部分切除 脾剝 胃重全剝	Pseudo cyst 6cm	malignant islet cell tumor	Fox ¹³⁾	1963
3	44	♂	心窩部腫瘍	GIS	脾体尾部腫瘍核出術	囊胞	malignant islet cell Adenoma	Winston ¹⁴⁾	1965
4	60	♂	低血糖	低血糖	脾尾・脾切除	cyst プラム大	insuloma	Leger ¹⁵⁾	1967
5	34	♀	脾尾新生物	経脾門脈造影 腹腔鏡	脾尾・脾切除	血性壊死物質を含む10cm径の仮性囊胞	malignant islet cell tumor(non functioning)	"	"
6	75	♀	脾頭部腫瘍	腹腔鏡	囊胞核出術	血性壊死性内容の囊胞8cm	insuloma	Deltz ¹⁶⁾	1975
7	19	♀	左上腹部腫瘍	腹部単純X線写真	脾尾部囊胞切除術	癆固を含む囊胞 14×10cm	malignant islet cell tumor	Strasser ¹⁷⁾	1975
8	46	♀	十二指腸潰瘍 高カルシウム血症	腹部単純X線写真 石灰化陰影	胃全剝, 脾重全剝, 脾剝	石灰化囊胞	islet cell tumor (non-beta) Zollinger-Ellison syndrome	Jahnke ¹⁸⁾	1977
9	46	♂	肝囊胞	GIS, Angio, 肝シンチ	腫瘍剔除術	線血を含む囊胞 10×8×7cm	non functioning islet cell tumor	高橋 ¹⁹⁾	1977
10	20	♀	左季肋部腫瘍	GIS エコー	脾体尾部切除	retention cyst 15×10cm	islet cell adenoma non functioning	Mitchener ²⁰⁾	1981
11	48	♂	脾囊胞	GIS, ERCP, Angio CT	脾尾・脾切除	石灰化を伴う囊胞	非機能性ラ氏島腫	仲川 ²¹⁾	1982
12	25	♀	仮性脾囊胞	GIS, Angio, エコー CT	脾尾切除	石灰化を伴う囊胞	非機能性ラ氏島腫	著者ら	1983

術後経過は順調で、1年6ヵ月を経て再発所見はみられない。

考 察

1) 発生頻度

膵嚢胞の発生頻度は Berk and Hanbrich²⁾によれば入院患者2,192,631人中174人で0.0046%の発生率であり、仮性嚢胞が多く Piper ら³⁾によると Mayo Clinic の膵嚢胞298例中仮性嚢胞は81.2%である。宮崎⁴⁾は59%と報告している。一方膵ラ島腫瘍は1902年 Nicholas⁵⁾が報告して以来増えているが、Lopez-Krugar⁶⁾の Mayo Clinic における集計では入院患者10,314例中44例0.4%と報告している。さらにラ島腫瘍はホルモン産生がない非活動性腫瘍の方が発生頻度が少ない⁷⁾。すなわち後者の場合、腫瘍が増大したための二次的な症状、たとえば閉塞性黄疸⁸⁾、十二指腸通過障害⁹⁾、急性腹症¹⁰⁾、などをきたさない限り発見されにくいからと思われる。

膵嚢胞とラ島腫瘍の合併症例の報告は1955年 Josi¹²⁾による61歳女子の症例が第1例で、その後著者らが文献上検索した範囲では11例の報告があるにすぎない(表1)。

2) 性および年齢

12例のうち5例が男性、7例が女性であり、年齢は19歳から75歳まで分布し、40歳台が5例と最も多かった。

3) 主訴および臨床症状

主として嚢胞による腫瘍触知、疼痛が主訴であり、活動性腫瘍を併発している症例では、そのホルモンの影響があらわれる。12例のうち嚢胞による腫瘍の触知が10例あり、疼痛をとともなうものが3例である。また12例のうち何んらかのホルモンによる症状を呈していたものが5例あり、低血糖症状を繰り返していた症例が1例、精神症状を反復していた症例が1例、十二指腸潰瘍の症状があった症例が1例、高カルシウム血症を呈した症例が1例で、この例は Multiple Endocrine Adenomatosis といえる。

4) 検査所見および診断

嚢胞に関しては腹部単純X線写真により右灰化陰影が見出された症例が3例、小腸ガスの偏位を認めた症例が1例、上部消化管透視により消化管の圧排所見が認められた症例が4例、腹腔鏡で嚢胞を観察したものが4例である。

ラ島腫瘍に関しては活動性腫瘍の場合は表1の症例3), 4), 8)のように術前診断が付けられる。

血管造影は著者らの1例を含めた2例に、超音波や Computed tomography scanner も2例にしか行われておらず、膵嚢胞は診断可能であったが、ラ島腫瘍の方は術前に指摘しえなかった。

5) 治療

12例とも手術が施行されている。術前診断のついた症例3), 4), 8)は嚢胞を含めた切除術がなされている。症例6)は術前診断のついていない Insuloma で嚢胞剔除術が行われている。また8例の膵嚢胞および非活動性腫瘍合併例では腫瘍剔除または膵部分切除がなされている。

合併症としては症例1)で、膵頭部の膵嚢胞を剔除し術後31日目に膵液瘻のため死亡している。

6) 病理

発生部位は12例中10例が膵体尾部であり2例が膵頭部である。また12例中4例が悪性ラ島腫であり8例が良性ラ島腫である。

12例中活動性腫瘍が4例であり、Insuloma が3例 non-beta cell tumor が1例で、非活動性腫瘍は8例であった。

膵嚢胞の方から検討してみると12例中11例が仮性嚢胞で1例が真性嚢胞であった。大きさは直径4cmから10cmにわたり内容はほとんどが凝血様のものであるが、黄色透明液であったものも3例ある。いずれも膵嚢胞壁に接してラ島腫瘍が併発しており、膵嚢胞とラ島腫瘍が離れて別個に存在していた症例はない。

7) 成因

膵嚢胞壁に接してラ島腫瘍が存在している事実より成因を推察してみると、

(i) ラ島腫瘍が発生し小膵管とを圧迫し末梢膵管に膵液貯留が起る。

(ii) ラ島腫瘍が発生し、その増生のため小膵管の破壊もしくは出血が起り、そこへ膵液が漏出し膵嚢胞を生ずる。

(iii) 膵嚢胞が生じ嚢胞壁の慢性炎症の刺激でラ島腫瘍が発生する。

などが考えられる。

症例10)の場合、膵嚢胞は Retention Cyst と診断され成因(i)に該当しよう。そのほかの11例は(ii)か(iii)が成因と思われるが、ラ島腫瘍が増殖し膵管が破綻し膵液が漏出して壊死を起し急性膵炎症状を呈したと考えられる1例を喜多¹⁰⁾が報告していることから、成因(ii)の方を推論する方が自然であろう。腹部外傷によりラ島腫瘍に出血が生じた1例¹¹⁾も報告されているよ

うに、ラ島腫瘍は易出血性の腫瘍でもある。

8) 予後

膵嚢胞に併発したラ島腫瘍の悪性度に依存する。

おわりに

膵嚢胞にラ島腫瘍を併発した症例はまれで本例は文献上12例目であり、これら12例を検討し成因を推察した。画像診断の普及とともに膵嚢胞の診断率は向上するが、既往に膵炎、外傷、アルコール嗜好がないときは、ラ島腫瘍を併発していることも念頭に置き、血清学的検索、病理学的検索を行うべきである。

本論文の要旨は第706回外科集談会にて発表した。また病理学的検索に御指導頂いた若林淳一先生、胃透視写真を提供下さった宮部政勝先生に謝意を表する。

文 献

- 1) Howard JH, Jor dan GL Jr: Surgical diseases of the pancreas. Phil & Montreal, 1960
- 2) Berk JE, Hanbrich WS: Gastroenterology. Edited by HL Bockus. Philadelphia, Saunders, 1965, p1052
- 3) Piper CE Jr, Rehline MH, Priestley JT: Pancreatic cystadenomata: Report of twenty cases. JAMA 180: 648-652, 1962
- 4) 宮崎逸夫: 膵嚢胞—診断基準をめぐって—。日臨 31: 605-612, 1973
- 5) Nichols AG: Simple adenoma of the pancreas arising from an island of Langerhans. J Med Pres 8: 385-395, 1902
- 6) Lopez-Kruglar R, Dockerty MB: Tumors of islet of Langerhans. Surg Gynecol Obstet 85: 495-511, 1947
- 7) Frantz VK: Atlas of Tumor Pathology. Washington, UFIP, 1959, fasc. p27-28
- 8) 渡辺哲弥, 石山俊治, 坂部 孝ほか: 黄疸を主徴とした膵島性腫瘍の1例。外科 37: 210-214, 1975
- 9) Brown CH, Neville WE, Hazard JB: Islet cell adenoma, without hypoglycemia, causing duodenal obstruction. Surgery 27: 616-620, 1950
- 10) 喜多豊志, 苔原 登, 世古田務ほか: 急性腹症で発症した膵ラ島非活動性腫瘍の1例。外科 44: 742-745, 1982
- 11) Saltzstein EC, Morales CA: Rupture of a giant nonfunctioning pancreatic islet cell tumor following minimal trauma. Ann Emerg Med 10: 145-147, 1981
- 12) Joshi RA, Bombay MB, Probsrein JG: Benign cystic islet-cell tumor of the head of the pancreas report of a case probably of delta-cell origin. AMA Arch Surg 70: 74-77, 1955
- 13) Fox NM, Ferris DO, Moertel CG et al: Pseudocyst Co-existent with pancreatic carcinoma. Ann Surg 158: 971-974, 1963
- 14) Winston JH: Malignant islet cell adenoma in a pancreatic cyst, report of a case. J Natl Assoc 57: 203-204, 1965
- 15) Leger L, Mizon JPC, Fasano JJ et al: Tumeur langerhansienne a forme kystique, a propos de deux cas. J Chir 94: 7-20, 1967
- 16) Deltz VE, Parwaresch MR: Zystisches insulom. Zbl Chir 100: 1521-1524, 1975
- 17) Strasser EJ, Demarco SJ III: Postpartum hemorrhage into a large nonfunctioning islet cell tumor of the pancreas. Am Surg 41: 444-447, 1975
- 18) Jahnke RW, Gnekow W, Harell GS: Non-beta islet cell tumor calcification associated with Z-E syndrome and multiple endocrine adenomatosis. Gastrointest Radiol 1: 345-347, 1977
- 19) 高嶋成光, 福田和馬, 芳村 剛ほか: 巨大な非機能性膵島細胞腫の1例。臨外 32: 925-928, 1977
- 20) Mitchenere P, Sott J, George P: Islet cell adenoma and retention cyst: A rare cause of acute pancreatitis. Br J Surg 68: 443-444, 1981
- 21) 仲川恵三, 中野 博, 中島祥介ほか: 膵仮性のう胞に併存した非機能性ラ島腫瘍の1例。胆と膵 3: 1079-1084, 1982