

## 膵の solid and cystic tumor の 1 例

春日井市民病院外科

待木 雄一 大村 豊 大橋 大造  
入谷 勇夫 小川 弘俊 加藤 政隆

名古屋市立大学第2病理

岸 本 秀 正

### A CASE REPORT OF SOLID AND CYSTIC TUMOR OF THE PANCREAS

Yuichi MACHIKI, Yutaka OMURA, Daizo OHASHI,  
Isao IRITANI, Hirotohi OGAWA, Masataka KATOH

Department of Surgery, Kasugai City Hospital

Hidemasa KISHIMOTO

Second Department of Pathology, Nagoya City University, Medical School

索引用語：若年者膵腫瘍,  $\alpha_1$ -antitrypsin, 膵外分泌腫瘍

#### はじめに

膵の solid and cystic tumor は非常にまれな疾患であり、その特徴は、若い女性に好発すること、腫瘍は solid な部分と cystic な部分から構成されていること、予後良好なことなどがある<sup>1)</sup>。本腫瘍は、最近になって報告が増加しているが、これは、分類がさだかでなかったため他の疾患、例えば膵腺房癌、膵嚢胞腺癌などと診断されることが多かったためと考えられる。この 1 例につき若干の文献の考察を加え報告する。

#### 症 例

患者：19歳，女性。

主訴：左下腹部腫瘍。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和59年ごろより左下腹部に腫瘍を自覚していたが、特に痛みもないため放置していた。昭和60年4月5日、左下腹部痛出現したため来院し、当院婦人科へ入院した。

入院時現症：体格、栄養中等度。眼瞼結膜に貧血なく、眼球強膜に黄疸なし。表在リンパ節は触知しなかった。腹部所見では、左下腹部に可動性良好で圧痛を伴わない弾性硬な腫瘍を触知した。

入院時検査所見：末梢血では赤血球 $509 \times 10^4 / \text{mm}^3$ 、Hb 14.0g/dl、白血球 $5,200 / \text{mm}^3$ 、血小板 $28 \times 10^4 / \text{mm}^3$ と異常を認めなかった。血液生化学検査では、GOT 23 KU、LDH 375Wro.U、ALP 4.4KAU、 $\gamma$ -GTP 6mU/ml、LAP 108GRU、ChE 0.75 $\Delta$ PH、s-Amylase 296Uと血中アマラーゼの軽度上昇が認められたが、carcinoembryonic antigen (CEA)、 $\alpha$ -fetoprotein (AFP)、Ferritin、carbohydrate antigen 19-9 (CA19-9)などの腫瘍マーカーはいずれも正常範囲内であった。

腹部超音波検査：腫瘍は充実性部分を有する囊腫様の所見を呈した(図1)。

Drip infusion pyelography (DIP)：左の腎盂の軽度の拡張を認めたが、造影剤の泄は良好であった。

以上より、卵巣腫瘍の疑いにて5月2日手術施行した。

術中所見：開腹したところ腫瘍は膵由来であることが判明した。小児頭大の腫瘍が膵体部下縁より発生しており、周囲臓器との癒着、浸潤は認めず、可動性良好であった。肉眼的にリンパ節転移は認めず、膵は通常の形態を示していた。腫瘍を一部の膵組織を含めて切除した。

切除腫瘍肉眼所見：腫瘍の大きさは、 $15 \times 11.5 \times 7.5$  cmで、表面は平滑、淡黄色を呈し波動を認めた。繊維性の厚い被膜を有し、その内容は、被膜に接した黄色

図1 腹部超音波検査. solid (S)な部分と cystic (C)な部分を認めた.

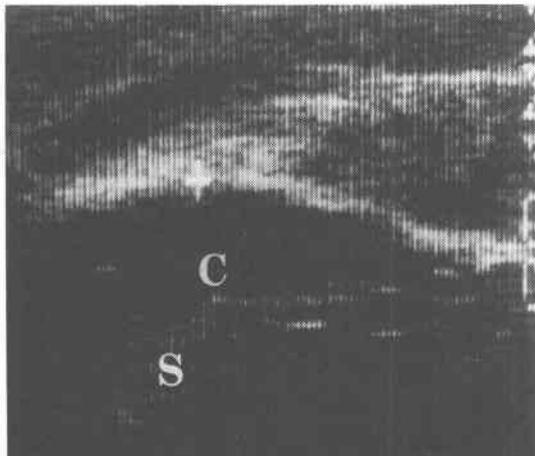
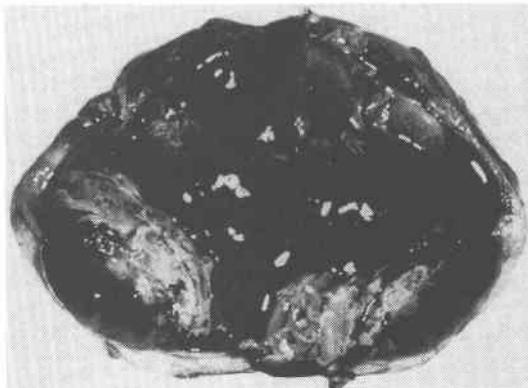


図2 摘出標本断面. 腫瘍は厚い被膜に覆われ充実性部分と液状部分とで構成されていた.



調の柔らかい充実性部分と、血液および壊死組織より成る液状の部分とで構成されていた(図2). 液状の部分中の Ferritin が1,200ng/dl と高値を示したが、CEA, AFP, CA19-9はいずれも正常範囲内であった.

病理所見：類円形の均一な核を持ち細胞質にやや乏しい腫瘍細胞が、fibrovascular stalk のまわりに乳頭状に増殖していた(図3a). 一部には、空胞化した腫瘍細胞が巣状に集まっている部分、好酸性で豊富な細胞

質を有する部分、pseudorosset を形成する部分を認めた(図3b). 毛細血管を伴う線維性的間質によって腫瘍組織は細葉大に分けられていたが、腺房構造は呈していなかった. また、均一な腫瘍細胞が硝子化した間質と無秩序に蜂巢構造を形成している部分も認めた(図3c). 全体的に mitosis には乏しかった. 腫瘍組織と正常脾組織の境界は、大部分は被膜を有し腫瘍組織が正常脾組織を圧迫している像であったが、一部に被膜を有せず両者が交錯している部分を認め、これは腫瘍の被膜内浸潤と考えられた(図3d). なお、切除断端には

図3 a: 腫瘍細胞は fibrovascular stalk の周囲に papillary に増殖している (HE 染色, 100倍). b: pseudorosset の形成を認める (HE 染色, 200倍). c: 硝子化した間質を持つ均一な腫瘍組織を認める (HE 染色, 40倍). d: 腫瘍組織が脾実質に浸潤している (HE 染色, 40倍).

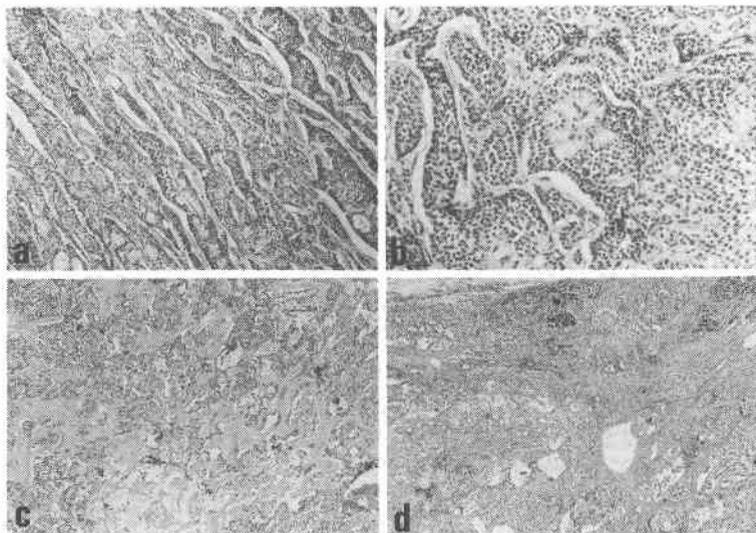
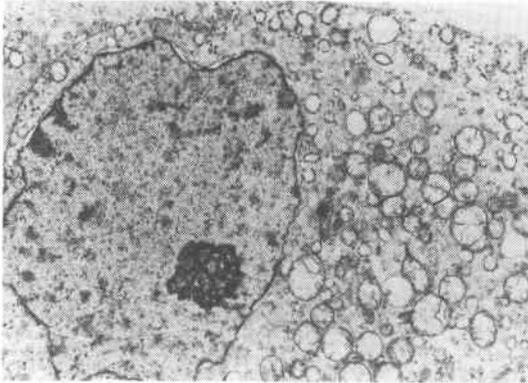


図4 電顕所見：mitochondriaを豊富に含み，ERは少ない。内分泌顆粒は認められない(電顕，3,000倍)。



腫瘍組織は露出していなかった。腫瘍組織の内外にはPAS陽性顆粒を散見し，酵素抗体法（peroxidase-antiperoxidase法）にて $\alpha_1$ -antitrypsin陽性であったが，insulinは陰性であった。

電顕所見：核は円形から楕円形を呈し周辺にはchromatin塊を認めた。細胞質はmitochondriaを豊富に含み，endoplasmic reticulum（以下ER）は少なかった。内分泌顆粒は認めなかった。外分泌顆粒も認めなかったが，ホルマリン固定後の戻し電顕であるため，これ以上の詳細は不明である（図4）。

以上より膵の solid and cystic tumor と診断した。術後の経過は良好で，約1年たった現在再発の徴候は認めない。

表1 膵の solid and cystic tumor と考えられる報告例

| 年度 | 報告者           | 年齢・性 | 主訴    | 部位  | 大きさ(cm)     | 術式       | 予後(生存年月) |
|----|---------------|------|-------|-----|-------------|----------|----------|
| 1  | 1959 Frantz   | 20 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 14×11×6     | 切除       | 21年      |
| 2  | " "           | 24 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 15×12×8     | 切除       | 15年      |
| 3  | 1970 Hamoudi  | 12 F | 腹部腫瘍  | 頭部  | 8           | 脾頭十二指腸切除 | 9ヵ月      |
| 4  | 1976 Taxy     | 13 F | 腹部腫瘍  | 頭部  | 6.5×5       | 脾頭十二指腸切除 | 3ヵ月      |
| 5  | 1979 Boor     | 19 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 13×12       | 脾尾部切除    | 1年       |
| 6  | 1980 Benjamin | 16 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 11          | 切除       | 2ヵ月      |
| 7  | 1981 Kloppel  | 23 F | 無症状   | 尾部  | 10×10       | 切除       | 1年       |
| 8  | " "           | 24 F | 腹部腫瘍  | 頭部  | 8×7         | 切除       | 1年       |
| 9  | " "           | 32 F | 無症状   | 頭部  | 2.5×2.5     | 切除       | 1年6ヵ月    |
| 10 | " "           | 30 F | 腹部不快感 | 尾部  | 5×4         | 脾尾部切除    | 6ヵ月      |
| 11 | " "           | 14 F | 腹部腫瘍  | 頭部  | 8×8         | 切除       | 不詳       |
| 12 | Schlosnagle   | 25 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 15          | 脾尾部切除    | 不詳       |
| 13 | " "           | 21 F | 無症状   | 頭部  | 8×5.5       | 脾頭十二指腸切除 | 不詳       |
| 14 | Lingg         | 29 F | 腹部不快感 | 体尾部 | 8×8         | 切除       | 2年9ヵ月    |
| 15 | Alm           | 16 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 9.5×9×6     | 脾尾部切除    | 1年6ヵ月    |
| 16 | 1982 Ruckert  | 33 F | 体重増加  | 尾部  | 8           | 脾尾部切除    | 2年       |
| 17 | " "           | 14 F | 腹部圧迫感 | 体部  | 8×8         | 切除       | 1年       |
| 18 | " "           | 24 F | 腹痛    | 頭部  | 8×7         | 切除       | 2年       |
| 19 | " "           | 30 F | 腹痛    | 体尾部 | 5×4         | 脾尾部切除    | 不詳       |
| 20 | 1983 Sanfey   | 24 F | 腹部膨満  | 体尾部 | 11×8×8      | 脾頭十二指腸切除 | 2年       |
| 21 | " "           | 21 F | 腹痛    | 頭部  | 12×12       | 脾全摘      | 7ヵ月      |
| 22 | Muro          | 13 F | 全身倦怠感 | 頭部  | 9×8×7       | 脾頭十二指腸切除 | 11ヵ月     |
| 23 | Fischer       | 24 F | 腹痛    | 頭部  | 8×7×6       | 脾頭十二指腸切除 | 1年       |
| 24 | Dale          | 33 F | 腹痛    | 体部  | 8×6         | 脾全摘      | 不詳       |
| 25 | Lack          | 12 F | 腹痛    | 体尾部 | 20          | 切除       | 8年後再発    |
| 26 | 1984 Morrison | 18 F | 腹痛    | 尾部  | 15          | 切除       | 5年       |
| 27 | " "           | 44 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 15          | 脾尾部切除    | 3年       |
| 28 | " "           | 19 F | 腹痛    | 頭部  | 6           | 切除       | 1年       |
| 29 | Bombi         | 22 F | 腹痛    | 体部  | 12×10×6     | 切除       | 2年       |
| 30 | " "           | 23 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 12.5×12×11  | 切除       | 10ヵ月     |
| 31 | Kuo           | 20 F | 腹部膨満  | 不明  | 15          | ドレナージ    | 2年10ヵ月   |
| 32 | " "           | 28 F | 不明    | 頭部  | 10          | 脾頭十二指腸切除 | 2年1ヵ月    |
| 33 | " "           | 19 F | 腹痛    | 頭部  | 5           | 脾頭十二指腸切除 | 2年2ヵ月    |
| 34 | 1985 Cubilla  | 12 F | 腹部腫瘍  | 体尾部 | 20          | 脾尾部切除    | 9年後死亡    |
| 35 | " "           | 24 F | 腹部腫瘍  | 体部  | 17          | 切除       | 6ヵ月      |
| 36 | Learmonth     | 17 F | 腹部腫瘍  | 頭部  | 10          | 脾尾部切除    | 2年8ヵ月    |
| 37 | " "           | 21 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 17          | 切除       | 11ヵ月     |
| 38 | Warren        | 33 F | 無症状   | 尾部  | 14×8×8      | 脾尾部切除、肝切 | 2年8ヵ月    |
| 39 | " "           | 35 F | 剖検    | 不明  | 2×2         | —        | —        |
| 40 | Grouls        | 47 F | 腹痛    | 体尾部 | 4.5         | 切除       | 1年       |
| 41 | 長谷川           | 31 F | 腹部腫瘍  | 尾部  | 13×11×10    | 脾尾部切除    | 11ヵ月     |
| 42 | " "           | 18 F | 腹痛    | 尾部  | 5.5×5       | 脾尾部切除    | 不明       |
| 43 | " "           | 12 F | 腹痛    | 頭部  | 4×4         | 脾尾部切除    | 不明       |
| 44 | 久保            | 13 F | 腹痛    | 体部  | 11×7×4      | 切除       | 8ヵ月      |
| 45 | 熊谷            | 35 F | 腹部腫瘍  | 頭部  | 7×7×5       | 脾頭十二指腸切除 | 3年6ヵ月    |
| 46 | 1986 Komorn   | 36 F | 腹部腫瘍  | 頭部  | 12×10       | 脾頭十二指腸切除 | 2年       |
| 47 | " "           | 24 F | 腹痛    | 体尾部 | 13×12       | 脾尾部切除    | 2年6ヵ月    |
| 48 | 山崎            | 14 F | 腹痛    | 尾部  | 7×5×4       | 体尾部切除    | 不詳       |
| 49 | 加藤            | 28 F | 腹部腫瘍  | 体部  | 10×10×6     | 体尾部切除    | 1年       |
| 50 | 自験例           | 19 F | 腹部腫瘍  | 体部  | 15×11.5×7.5 | 切除       | 1年       |

## 考 察

本腫瘍はまれな膵腫瘍で、1959年 Frantz<sup>2)</sup>が papillary tumor of the pancreas と命名して報告して以来現在までわれわれの検索しえた範囲内では海外で42例、本邦で7例報告されているにすぎない。Morohoshi<sup>3)</sup>によると、膵外分泌系由来腫瘍246例中7例(2.7%)とその頻度は少ない。また、名称も統一されておらず、papillary cystic tumor<sup>4)~6)</sup>、solid and papillary neoplasm<sup>7)~9)</sup>、solid and cystic tumor<sup>10)</sup>などさまざまな名称で報告されている。

自験例も含めた報告例50例について検討した。全例が女性で、年齢は12~47歳、平均23歳と若年女性に好発していた。症例呈示がなかったためこの集計からは除外したが、Friedman<sup>11)</sup>は2例の男性症例を報告している。主訴は腹部腫瘍が42%と1番多く、黄疸、激しい腹部症状などを呈したものはなかった。占拠部位には特定の傾向はなく、大きさは最大径が2~20cm、平均10.3cmと比較的大きな腫瘍が多かった。治療は26例に膵切除、20例に腫瘍切除が行われていた。切除後の予後は良好で再発死亡は1例のみであった。

本腫瘍の origin は現在のところまだ解明されていない。Klöppel<sup>1)</sup>は、酵素抗体法にて腫瘍細胞が  $\alpha_1$ -antitrypsin 陽性で、電顕にて Zymogen 顆粒を認めることから acinar cell origin と報告し、Schlonsnagle<sup>12)</sup>は、電顕にて神経分泌顆粒を認めた症例を報告し、multipotential duct cell より発生すると推測している。Morrison<sup>5)</sup>は、酵素抗体法で insulin 抗体に淡く染まる症例を報告し、内分泌、外分泌どちらへも分化しうる内胚葉原基細胞より発生すると推測している。以上のごとく origin についてはさまざまな説があり、今後の詳細な検討が必要である。自験例は酵素抗体法で  $\alpha_1$ -antitrypsin 陽性で、電顕では内分泌顆粒は認めず、ER の発達が悪く、mitochondria が密に存在しており、膵腺房中心細胞に近い形態をとっていた。これは duct origin を示唆していると考えられる。

また、本腫瘍の術後の予後は良好であるが、悪性腫瘍と考えている報告も少なくない。Frantz<sup>2)</sup>は“pathologist's cancer”という表現を用いて悪性の可能性は否定できないと述べている。Lack<sup>13)</sup>は8年後に局所再発した1例を報告し、Cubilla<sup>4)</sup>は、術後9年目に再発死亡した症例があったため悪性腫瘍として扱っている。Warren<sup>6)</sup>は肝転移のあった症例に膵全摘、肝切除を行い再発の徴候のない1例を報告している。Dales<sup>14)</sup>は門脈浸潤を認めた1例を報告している。本腫

瘍は悪性度は低く臨床的には予後良好であるが、転移、浸潤は起しうると考えられる。

## 結 語

膵外分泌系由来と考えられた悪性度の低い膵腫瘍である solid and cystic tumor の1例について若干の文献的考察を加え報告した。

## 文 献

- 1) Klöppel G, Morohoshi T, John HD et al: Solid and cystic acinar cell tumor of pancreas. *Virchows Arch Pathol Anat* 392: 171-183, 1981
- 2) Frantz VK: Tumor of the pancreas. *Atlas of tumor pathology* 7. Armed Forces Institute of Pathology, 1959, p27-33
- 3) Morohoshi T, Held G, Klöppel G: Exocrine pancreatic tumor and their histological classification. A study based on 167 autopsy and 97 surgical case. *Histopathology* 7: 645-661, 1983
- 4) Cubilla AL, Fitzgerald PJ: Tumors of the exocrine pancreas. *Atlas of tumor pathology* 19. Armed Forces Institute of Pathology, 1984, p201-207
- 5) Morrison DM, Jewell LD, McCaughey WTE et al: Papillary cystic tumor of the pancreas. *Arch Lab Med* 108: 723-727, 1984
- 6) Warren RB: Papillary cystic tumor of the pancreas. *Arch Pathol Lab Med* 109: 706-707, 1985
- 7) Compagno J, Oertel E, Kermzar M: Solid and papillary epithelial neoplasm of the pancreas probably of small duct origin. A clinicopathologic study of 52 cases. *Abstr Lab Invest* 40: 248-249, 1979
- 8) Sanfey H, Mendelsohn, Cameron JL: Solid and papillary neoplasm of the pancreas. *Ann Surg* 197: 727-725, 1983
- 9) Kuo TT, Su IT, Chien CH: Solid and papillary neoplasm of the pancreas. *Cancer* 54: 1469-1474, 1984
- 10) 長谷川洋, 二村雄二, 早川直和: 膵の solid and cystic tumor の1例. *日消外会誌* 18: 2507-2510, 1985
- 11) Friedman A, Lichtenstein JE, Fishman EK et al: Solid and papillary epithelial neoplasm of pancreas. *Radiology* 154: 333-337, 1985
- 12) Schlonsnagle DC, Campbell WG: The papillary and solid neoplasm of the pancreas. *Cancer* 47: 2603-2610, 1981
- 13) Lack EE, Levey RL, Cassady JR et al: Tumors of the exocrine pancreas in children and adolescents. *Am J Surg Pathol* 7: 319-327, 1983
- 14) Dales RL, Garcia JC, Davies RS: Papillary-cystic carcinoma of the pancreas. *J Surg Oncol* 22: 115-117, 1983