日消外会誌　23（7）：1892～1896，1990年

肝内異所性膵の１例

馬場記念病院外科
西口　幸雄　　金　　光司　　中河　宏治　　李　　在都
市川久次郎　　冬廣　雄一　　馬場　　満
和泉市立病院病理
田　　中　　勲

総胆管結石，肝内胆管拡張症の患者に手術を施行し，切除肝に異所性膵が発見されたまれな症例を経験したので報告する．

患者は42歳，男性．全身倦怠感，黄疸を主訴に入院す．腹部超音波検査および腹部CT検査にて，総胆管および肝内胆管左枝の著明な拡張を認め，総胆管内に結石陰影を認めた．ERCPでは総胆管は著明に拡張し，その中に浮遊する結石陰影を認めた．また，肝内胆管右枝の拡張は軽度であったが，左枝の外側枝は径1cmと拡張を認めた．以上の結果より，総胆管結石症および左肝内胆管拡張症と診断し，胆摘，総胆管切石後肝左葉外側区域切除術をあわせて施行した．病理組織学的所見にて不整な形をした胆管と，その周囲に増生する小胆管と小葉構造をとる異所性膵組織が認められた．

Key words: heterotopic pancreas, heterotopic tissue in the liver

1．緒　言

異所性膵は一般に十二指腸や胃などの消化管の壁内に多く，まれに肝，脾，腸間膜などにもみることがあるとされる[1]．しかし文献的には，肝に発見された異所性膵は本邦では報告例はなく，欧米においてもわずか４例が報告されたにすぎない[2)~5)]．著者らは総胆管結石，肝内胆管拡張症の患者に手術を施行し，切除肝に異所性膵が発見されたまれな症例を経験したので，若干の文献的考察を加えて報告する．

2．症　例

患者：42歳，男性．

主訴：全身倦怠感，黄疸．

家族歴：父，高血圧．

既往歴：21歳，十二指腸潰瘍．

現病歴：昭和63年５月19日ごろより右側腹部痛出現，同時に褐色尿を認めた．５月20日近医受診し肝機能異常を指摘され，当院紹介され入院となった．

入院時現症：身長161cm，体重64.5kg．体温36.3℃．血圧124/94mmHg，脈拍78/分．体格，栄養中等度．眼瞼結膜に貧血はないが，眼球強膜に黄疸を認めた．心，肺に理学的に異常所見なし．腹部は平坦で軟，心窩部に圧痛を認めるが，肝，脾，腎および腫瘤は触知しなかった．

入院時一般検査所見：血清transaminaseおよび胆道系酵素の高値を認め，血清総ビリルビン値も4.28mg/dlと高値を認めたが，ほかの検査成績には異常所見を認めなかった（**Table 1**）．

腹部超音波検査所見：総胆管および肝内胆管の著明な拡張を認めた（**Fig. 1**）．

Table 1　Laboratory data on admission

Hematology		BUN	10.4mg/dl
RBC	494×10⁴/mm³	Cre	0.9mg/dl
Ht	49.5%	T-cho	167mg/dl
Hb	15.8g/dl	TG	77mg/dl
WBC	6100/mm³	Glucose	118mg/dl
Plt	33.9×10⁴/mm³	Na	141mEq/ml
Biochemistry		K	3.9mEq/ml
TP	7.4g/dl	Cl	101mEq/ml
Alb	4.5g/dl	CRP	0.3mg/dl
GOT	387U/l	AFP	7.1mμg/ml
GPT	554U/l		
LDH	661U/l		
ALP	556U/l		
LAP	272U/l	Urinalysis	
γ-GTP	510U/l	Protein	(±)
CPK	64U/l	Glucose	(−)
ChE	6246U/l	Occult blood	(−)
ZTT	6.3K.U.		
T.Bil	4.28mg/dl	Urobilinogen	(+)
Amylase	89S.U.	Bilirubin	(3+)

＜1990年２月14日受理＞別刷請求先：西口　幸雄
〒592　堺市浜寺船尾町東４－244　馬場記念病院外科

Fig. 1 Ultrasonography. US shows dilated common bile duct (↓) and left branch of intrahepatic bile duct (↑).

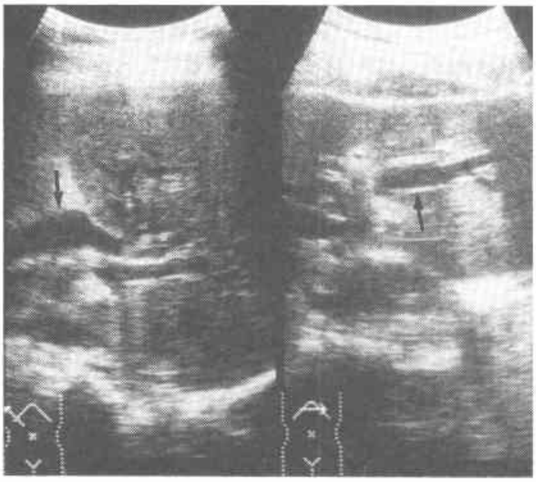
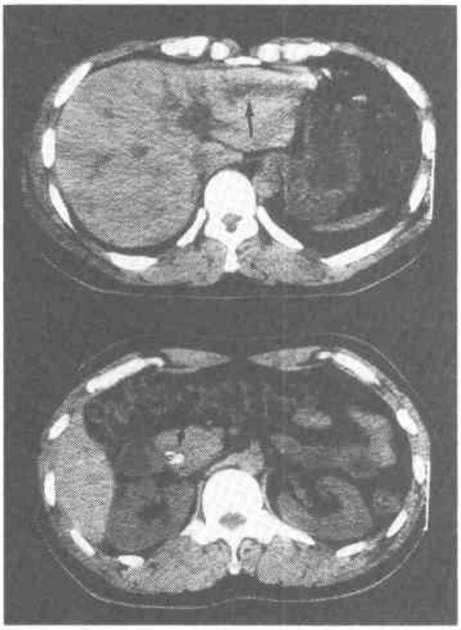


Fig. 2 Computed tomography. CT reveals dilated left branch of intrahepatic bile duct (↑) and calcified stones in common bile cluct (↓).



腹部 computed tomography (CT) 検査所見：肝は均一で腫瘤像を認めず，総胆管および肝内胆管左枝の著明な拡張を認め，総胆管内に結石陰影を認めた(**Fig. 2**).

Endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP) 所見：総胆管は著明に拡張し，その中に浮遊する結石陰影を認めた．また，肝内胆管右枝の拡張は軽度であったが，左枝の外側枝は径1cm と拡張を認めた (**Fig. 3**).

Fig. 3 Endoscopic retrograde cholangiopancreatography. Dilated common bile duct and left branch of intrahepatic bile duct (↓) and floating stones (←) in common bile duct are depicted by ERCP.

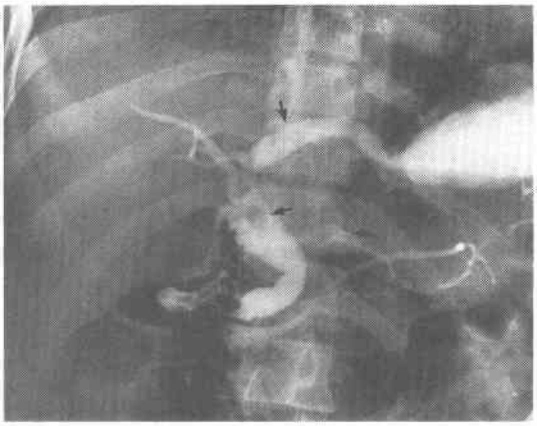
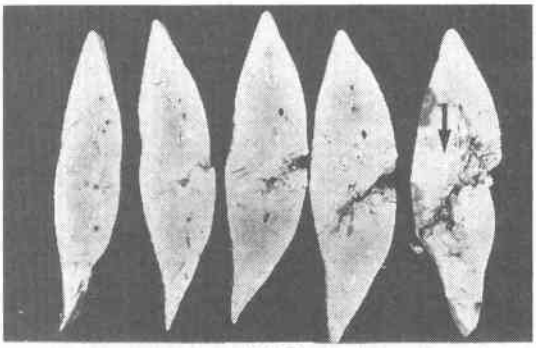


Fig. 4 Resected specimen (cross section). Dilated bile duct and interlobular connective tissue proliferating fibers (↓) are shown.



以上の結果より，総胆管結石症および左肝内胆管拡張症と診断し，血清総ビリルビン値，血清 transaminase 値が正常範囲となったところで手術を施行した．

手術所見：上腹部正中切開にて開腹す．腹腔内には腹水なく，視診および触診上は胃，小腸，大腸，肝臓，膵臓に異常所見は認めなかった．胆嚢内には結石を触知しなかった．胆嚢摘出術後，総胆管を切開し結石を

除去，術中胆道ファイバーでは肝内胆管，総胆管に異常を認めなかったが，術中胆管造影ではやはり肝内胆管左枝外側区域の拡張を認めたので肝左葉外側区域切除術をあわせて施行した．

切除標本(割面)：切除肝のホルマリン固定後の割面で，拡張した胆管と腺維の増生を伴う小葉間結合織(矢印）が見られる．肝硬変症や腫瘍は認められなかった(**Fig. 4**)．

病理組織学的所見：弱拡大では不整な形をした胆管と，その周囲に増生する小胆管と小葉構造をとる異所性膵組織（矢印）が認められた（**Fig. 5**)．強拡大ではその膵組織には，胞体内に酵素原顆粒を持つ腺胞細胞と，胞体の明るい腺房中心細胞や介在部がみられた．

Fig. 5 Histology of resected specimen (H & E, × 20). Dilated bile duct, cholangiolar proliferation and pancreatic tissue having lobular strucfure are shown.

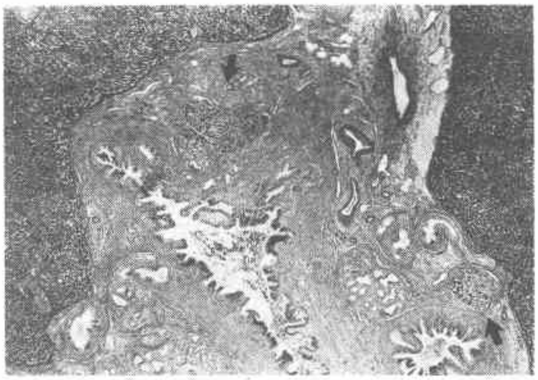
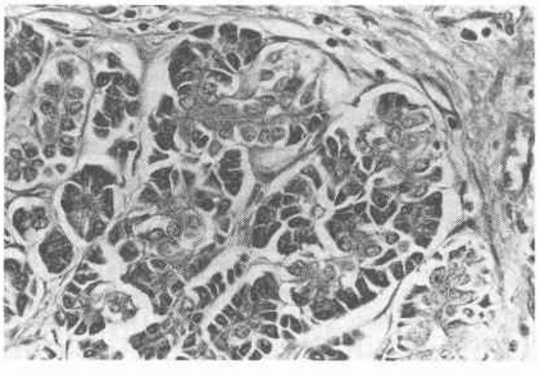


Fig. 6 Histology of resected specimen (H & E, × 400). Acinar cells having Zymogen granules, clear centroacinar cells and intercalated ducts are shown. But no Langerhans' islands are shown.



なお，ランゲルハンス島は認められなかった(**Fig. 6**).

3. 考 察

異所性膵(heterotopic pancreas)は迷入膵(ectopic pancreas または aberant pancreas) あるいは副膵(accesory pancreas) などとも呼ばれ，本来の膵より独立して完全に連絡がなく，他臓器の中に存在し膵構造を示す組織塊をいう[6]．

発生原因についてはいまだ定説がなく，個体の発生過程における形成異常説が有用である．Barbosa[7]によれば，通常萎縮する腹側膵原基の左葉が迷入膵発生の根拠の1つになっており，その遺残ないし不完全な退縮または軸転の際に腸間膜，胃，腸の壁などに癒着するためか，あるいは原始膵管の側芽に由来するなどといわれている．

異所性膵は一般に剖検例で0.2～5.6%にみられるとされ[8]，男性が68%と女性に比べ優位にみられ[9]，年齢は30歳代から50歳代に多く認められている[9)10]．大きさは1.0～5.0cm のものが87.0%を占め，単発例が95.6%を占めるとされる[10]．

Pearson[11]は文献的に589例を集計し，局在部位は十二指腸30%，胃25%，空腸15%，回腸3%，Meckel 憩室6%であり，胆嚢，総胆管，肝臓，脾臓，縦隔にも小数ながら認められたと報告し，Busard ら[12]の543例，Barbosa ら[7]の471例の集計でもほぼ同様の傾向を認めている．

異所性膵は術前診断が困難なことから，粘膜下腫瘍，難治性潰瘍，癌の疑いなどで手術がなされたり，本症例のごとく他の疾患で手術した際に切除標本から偶然に発見されたり，または剖検時に発見されたりする[13]．それでも半数以上の患者は上腹部痛，上腹部不安定症状，悪心，嘔吐，食欲不振などの症状がみられているが，無症状の人も多く，異所性膵それ自体によると思われるものはむしろまれであるといわれている[7)9)10]．

異所性膵の診断は容易ではなく，消化管内の異所性膵に関しては，X線検査，内視鏡検査で粘膜下腫瘍という診断およびある程度の質的推定は可能であるが，確定診断は困難である．消化管以外の異所性膵に関しても CT，超音波検査などの画像診断にて発見可能な大きさにならなければ，なかなか術前診断されることは難しいと思われる．肝に発生した異所性膵の報告例が少ない理由として，消化管内の異所性膵は腫瘍として発見するのは比較的容易であるが，肝内の異所性膵は術前においても，また切除肝，剖検肝においても小

Table 2 Reported cases of the ectopic pancreas in the liver

Case	Author (Year)	Age, Sex	Symptom	Accompanying disease	Preoperative diagnosis	Operaticn	Size	Heinlich's classification
1	Ballinger (1941)	53, M	Hypoglycemia	none	Insulinoma (Pancreas)	Exploratory laparotomy	9×6×4 cm 13×11×5 cm	I
2	Mobini (1974)	68, F	Abdominal tumor	none	Leiomyoma of the stomach	Left lobectomy of the liver	φ 7 cm	II
3	Lieutaud (1978)	39, M	none	Seminoma	Metastatic liver tumor	Extirpation of the tumor	3.5×2.0 cm	II
4	Payan (1985)	46, M	Epigastralgia Retrosternal pain	Intra hepatic stone Calori's disease	Calori's disease	Left lobectomy of the liver Choledocho－Jejuno-stomie	microscopical	II
5	Nishiguchi (1988)	42, M	Jaundice	Choledocho-lithiasis	Choledocholithiasis Dilataticn of left branch of intrahepatic bile duct	Cholecystectomy Choledocholithotomy Left lobectomy of the liver T tube drainage	microscopical	II

さければ腫瘍として確認するのがなかなか困難であるためであると考えられる．

肝に発生した異所性膵は，本邦では報告例は無く，欧米においてもわずか4例が報告されたに過ぎない[2)~5)]．いずれの症例も正しく術前診断がなされたものはなく，本症例同様手術後の病理組織学的検査にて初めて異所性膵と診断されたものである．報告例4例を見ると，第1例目のような腫瘍の大きいものは組織学的に膵外分泌組織だけでなく，内分泌組織も備えていた（**Table 2**）．著者らの症例は第5例目であり，肝内拡張胆管の周囲に膵組織がみられ，外分泌組織は認められたが内分泌組織は確認できなかった．また本症例に見られたような肝内胆管の拡張と異所性膵組織の因果関係について言及することは難しいが，拡張肝内胆管周囲のみに異所性膵が認められたことより異所性膵組織の存在が肝内胆管を拡張させた可能性が推測された．

終わりに異所性膵と癌化との関連性については，一般に迷入組織は悪性化しやすいといわれており，組織学的には膵癌と同じよう導管を発生する腺管腺癌が多く，明らかに迷入膵から癌が発生したという報告例もあるが[14)~16)]，胃の迷入膵の癌化例の報告は極めて少なく[17)18)]，村田ら[19)]によると，胃癌切除例中の0.2%と述べられている．したがって迷入膵を母地とした悪性腫瘍の診断にあたっては慎重でなければならないと思われる．

文　献

1) 林　活次：膵の病変・宮地　徹編．臨床組織病理学．杏林書院，東京，1976，p391—411
2) Ballinger J: Hypoglycemia from metastatazing insular carcinoma of aberrant pancreatic tissue in the liver. Arch Pathol 32：277—281, 1974
3) Mobini J, Krouse TB, Cooper DR: Intrahepatic pancreatic heterotopia. Dig Dis 19：64—70, 1974
4) Lieutaud R, Choux R, Vague D et al: Hyperplasienodulaire du foie (cirrhose pseudotumorare) a propose de 7 observations. Arch Anatomie Cytol Pathol 28：113—118, 1980
5) Payan MJ, Choux R, Sahal J et al: Caroli's disease assosiated with pancreatic heterotopia and billiary papillomatosis. Histopathology 9：1001—1006, 1985
6) 両田実喜男，副島和彦，諸星利男：迷入膵．肝・胆・膵 8：513—520, 1984
7) Barbosa JJ, Dockerty MB, Wally JM: Pancre-

atic Heterotopia. Riview of the Literature and Report of 41 Authenticated Surgical Cases, of Which 25 were Clinically Significant. Surg Gynecol Obstet 82：527—542, 1946
8) 長与健夫, 横山秀吉, 駒越喬貞：胃壁内迷入膵の病理所見. 胃と腸 5：1423—1428, 1970
9) Palmer ED: Benign intramural tumors of the stomach. A review with special reference to gross pathology. Medicine (Balt) 30：81—182, 1951
10) 大井 実, 三穂乙実, 伊東 保ほか：非癌性胃潰瘍—全国93主要施設からの集計的調査—. 外科 29：112—133, 1967
11) Pearson S: Aberrant Pancreas：Review of the Literature and Report of Three Cases, One of Which Produced Common and Pancreatic Duct Obstruction. Am Arch Surg 63：168—184, 1951
12) Busard JM, Walters W: Heterotopic Pancreatic Tissue-Report of a Case Presenting Symptoms of Ulcer and Review of the Recent Literature—. Arch Surg 60：674—682, 1950
13) 北 陸平, 中村積方, 松島康博ほか：迷入膵の臨床病理学的検討. 消外 6：1507—1512, 1983
14) 大原 到, 菊地弘一：前癌性変化を示した胃副膵の1例. 外科の領域 2：564—566, 1954
15) Duff GL, Foster HL, Bryan WW: Primary Carcinoma of the Infra-Ampullary Portion of the Duodenum with Example of Probable Origin From Aberrant Pancreatic Tissue. Arch Surg 46：494—503, 1943
16) Butcher HR: Heterotopic pancreas. Edited by Ackerman LV. Surgical Pathology. 4th Ed., CV Mosby Co, St Louis, 1968, p336—337
17) 吉井隆博：迷入膵. 特に組織像の読み方. 吉井隆博編. 胃の病理. 医学図書出版, 東京, 1973, p227—280
18) 三坂亮一：胃と異所性膵組織の併存例の臨床病理学的検討. Prog Dig Endosc 16：105—109, 1980
19) 村田達也, 倉田 稔, 軽部克己：胃壁内副膵の癌化が疑われた早期胃癌の2症例. 癌の臨 15：815—821, 1969

A Case of Heterotopic Pancreas in the Liver

Yukio Nishiguchi, Kwang-Sa Kim, Hiroji Nakagawa, Jae-do Lee, Hisajirou Ichikawa,
Yuichi Fuyuhiro, Mitsuru Baba and Isao Tanaka*
Department of Surgery, Baba Memorial Hospital
*Department of clinical Pathology, Izumi Municipal Hospital

We experienced a case of ectopic pancreas in the liver which is very rare and has not been reported in Japan. A 42-year-old man was admitted to the hospital with general fatigue and jaundice. Ultrasonography and computed tomography revealed severe dilatation of the common bile duct and the left branch of the intrahepatic bile duct. Endoscopic retrograde cholangiography revealed floating stones in the common bile duct. Cholecystectomy and choledocholithotomy were performed. Intraoperative cholangiography revealed dilatation of the left branch of the intrahepatic bile duct, so left lateral segmentectomy of the liver was performed. Macroscopically no tumor was seen in the resected liver, but histologic examination revealed ectopic pancreatic tissues, which were composed of acini, ducts and no islet cells, along the dilated intrahepatic bile ducts.

Reprint requests: Yukio Nishiguchi　Department of Surgery, Baba Memorial Hospital
4-244 Hamaderahunaocho Higashi, Sakai, 592 JAPAN