

膵の solid and cystic tumor の 1 例

千葉労災病院外科, 同 病理*

志村 賢範 鈴木 秀 塚本 剛 真田 正雄
大坪 義尚 平田 正雄 今野 暁男*

膵の solid and cystic tumor の 1 例を経験したので報告する。患者は24歳女性で、主訴は心窩部痛である。入院時臨床検査所見では、血中エラスターゼー1の上昇以外に異常を認めなかった。超音波、computed tomography (CT)、血管造影より膵頭部の嚢胞性腫瘍を疑い、手術(腫瘍核出術)を施行した。腫瘍は明らかな被膜により被われ、その内部には嚢胞状変性と出血壊死が認められた。病理組織所見では、腫瘍細胞は乳頭状に増殖し、その一部には嚢胞状変性も認められた。免疫組織化学的検査では neuron specific enolase (NSE) 染色、 α_1 -antitrypsin 染色は陽性であったが膵酵素、膵ホルモンに対する反応は陰性であった。電顕では特別な分泌顆粒は認め得なかった。以上の所見より膵の solid and cystic tumor と診断した。患者は術後10か月の現在、再発の兆候なく経過観察中である。

Key words: solid and cystic tumor of the pancreas, neuron specific enolase, α_1 -antitrypsin

はじめに

最近、われわれは比較的若年女性の膵に発生し腺房細胞由来と考えられる嚢胞性膵腫瘍を経験した。その肉眼形態、病理組織所見、免疫組織化学的検索、電顕所見などより Frantz¹⁾、Klöppel²⁾が報告した solid and cystic acinar cell tumor と極めて類似していた。若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：24歳、女性。

主訴：心窩部痛

既往歴、家族歴：特記すべき事なし。

現病歴：平成元年4月28日頃、心窩部痛出現し、さらに右上腹部に腫瘤触知し、近医受診した。腹部超音波検査および上部消化管造影にて膵頭部嚢胞性腫瘍を指摘され5月4日当科紹介された。

入院時現症：身長152cm、体重45kg、栄養状態良好、貧血・黄疸なし、表在リンパ節の腫脹はなかった。腹部触診にて右季肋部に4cm×6cmの境界明瞭、表面平滑、弾性やや硬の可動性の少ない腫瘤を触知した。腫瘤の圧痛は強くなかった。

臨床検査所見：Elastase-1の上昇以外は血液一般、血液生化学、血漿ホルモン値に異常を認めなかった (Table 1)。

Table 1 Laboratory data on admission

Peripheral blood		Biochemical examination	
WBC	6,700 /mm ³	TP	7.6 g/dl
RBC	416×10 ⁴ /mm ³	TB	0.5 mg/dl
Hb	12.5 g/dl	ZTT	8.0 U
Ht	39.5 %	Alp	100 IU/l
Plt	28.3×10 ⁴ /mm ³	GOT	11 IU/l
		GPT	6 IU/l
		LDH	337 IU/l
Tumor marker		γ -GTP	7 IU/l
AFP	3.3 ng/ml	LAP	35 IU/l
CEA	0.3 ng/ml	AMY	85 IU/l
CA19-9	17 U/ml	CRP	0.4
Elastase-1	1700 ng/dl	FBS	85 mg/dl
Insulin	3.1 uU/ml		

1. 画像診断所見

上部消化管造影：十二指腸脚の著明な開大と胃前庭部の圧排を認めた。

経静脈的胆道造影検査：総胆管および胆嚢の圧排を認めた。

超音波検査：膵頭部に8cm×7cmの嚢胞を認めた。嚢胞内には、一部充実性腫瘤様部分と隔壁を認め、膵嚢胞腺腫あるいは膵嚢胞腺癌が疑われた (Fig. 1)。

Computed tomography (CT) 検査：膵頭部に境界明瞭な嚢胞性腫瘍を認め、造影CTにて腫瘍の内部は一部充実性の部分に軽度の enhancement を認めるも全体としてはあまり enhance されず不規則な部分が混在し、壊死または出血巣からなると考えられた (Fig. 2)。

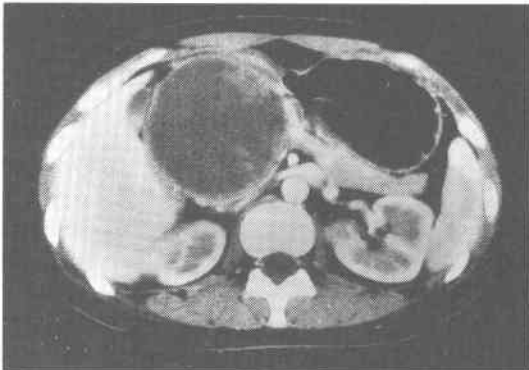
内視鏡的逆行性膵管造影検査：主膵管は膵頭部で腹側よりの圧排所見を示し、また膵体部から膵尾部にか

<1990年10月11日受理> 別刷請求先：志村 賢範
〒290 市原市辰己台東2-16 千葉労災病院外科

Fig. 1 Ultrasonography indicates a large mass which contains cystic areas with irregular septae and tumor excrescences



Fig. 2 Computed tomogram shows large round cystic mass of the pancreas head with internally protruding enhanced mass



けて軽度の拡張所見を示していた。

腹部血管造影：上腸間膜動脈造影にて膵十二指腸動脈および門脈の圧排・伸展を認めるも、腫瘍血管の新生や腫瘍濃染像などの悪性所見は認めなかった。

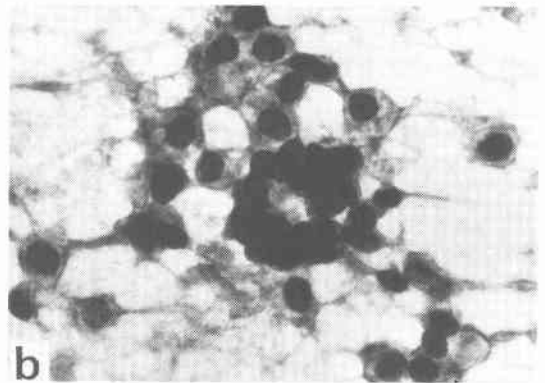
以上の所見より膵頭部に発生した膵嚢胞腺腫（癌）あるいは仮性膵嚢胞を疑い、平成元年5月29日開腹手術施行した。

手術所見：腫瘍は膵頭部表面から前方に球状に突出して存在し、十二指腸脚は右前方にまた、胃前庭部、総胆管および胆嚢は上方に、それぞれ圧排されていた。腫瘍は被膜を有し、その境界は明瞭で周囲組織への腫瘍性浸潤は見られず、容易に腫瘍核出術が行われた。

Fig. 3a A photograph of resected specimens shows simple large cyst with numerous irregular protrusion



Fig. 3b Cytological examination shows pseudo-rosette formation



2. 病理学的所見

肉眼所見：腫瘍は9cm×8cm×10cm、肥厚した結合組織で囲まれ、内部は出血壊死組織で充満していた(**Fig. 3a**)。

細胞診所見：摘出標本の断面における充実性部分よりの捺印細胞診では、核は円形～類円形で大小不同はあまり認めず、細顆粒状のクロマチンがほぼ均等に分布しており、極めて異型性に乏しかった。さらに一部には腫瘍細胞のロゼット様配列も見られた(**Fig. 3b**)。

病理組織学的所見：腫瘍細胞は乳頭状に増殖し、所々に出血を伴う嚢胞状部分も混在していた(**Fig. 4**)。PAS染色、Grimelius染色は陰性であった。酵素抗体法による免疫組織化学的検索では、 α_1 -antitrypsin染色、neuron specific enolase (NSE)染色が陽性であった(**Fig. 5a, b**)。インスリン、グルカゴン、ソ

Fig. 4 Photomicrograph of specimen (hematoxylin & eosin) shows papillary configuration with cystic degeneration. ($\times 25$)

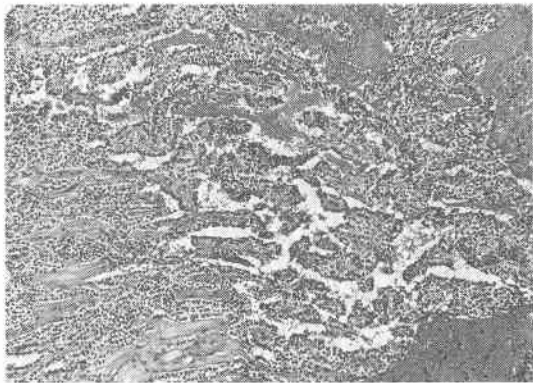
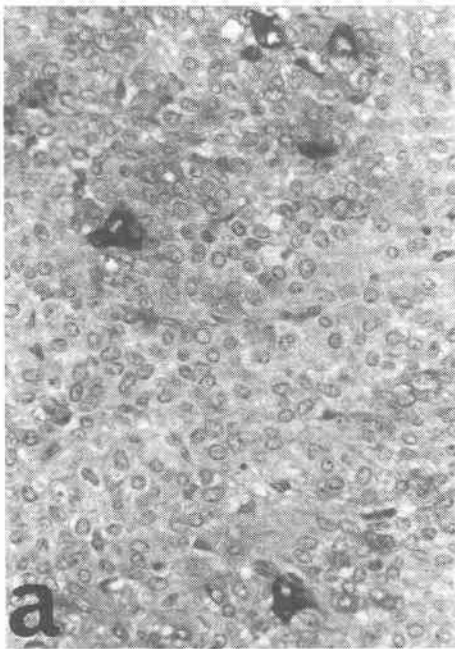


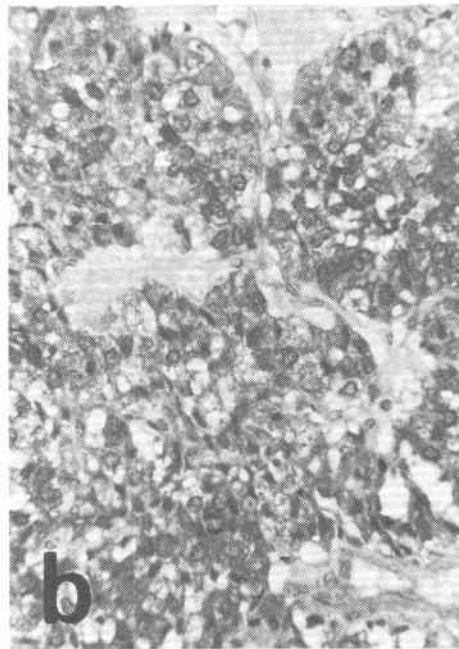
Fig. 5a Positive immunocytochemical staining for α_1 -antitrypsin. ($\times 150$)



マトスタチン、膵ポリペプチド染色はすべて陰性であった。

電顕所見：細胞質内に内分泌顆粒はまったく見られず、チモーゲン顆粒も少量であった。以上の所見より、最初 hematoxylin・eosin (H・E) 染色のみでは islet cell tumor の診断であったが免疫組織学的検索、電顕所見などより腺房細胞由来と考えられ、Klöppel らの

Fig. 5b Positive immunocytochemical staining for neuron specific enolase. ($\times 100$)



提唱した solid and cystic acinar cell tumor が強く疑われた。

術後経過：術後10か月の現在、無症状で社会復帰している。

考 察

Solid and cystic tumor は、若年女性に好発する極めて悪性度の低い腫瘍であるが、これまで非機能性ラ島細胞腫(癌)、嚢胞腺腫(癌)などと診断され膵頭十二指腸切除などの過大な治療が行われていた可能性があり最近注目を浴びてきた³⁾。本腫瘍については既に1959年 Flantz¹⁾が Papillary tumor of the pancreas として報告したのに始まり、その後、種々の名称で報告され1981年 Klöppel ら²⁾が solid and cystic acinar cell tumor として報告して以来、わが国では、この名称が多く使用されている。本邦報告例は、現在までに約60例であるが⁴⁾⁵⁾今後症例の見直しにより、さらに増えるものと思われる。

腫瘍の発生起源に関しては腺房細胞由来とする意見が強いが²⁾⁶⁾、最近では、内分泌あるいは外分泌細胞のいずれへも分化し得る multipotential stem cell あるいは primordial cell 由来とする考えに変わりつつあり⁷⁾、今後さらに検討される問題であろう。

本症の臨床的特徴としては、ほとんどが若年女性で腹部腫瘤触知として発見され、発生部位としては膵頭部に多い傾向があり、腹部症状は軽度である。

術前の診断根拠となる画像診断の特徴としては、超音波検査では辺縁は平滑で境界明瞭であり内部は混合性エコーパターンを呈することが多い。CT 検査では辺縁明瞭で周囲臓器への浸潤像やリンパ節腫大は認めない。血管造影では hypovascular であり周囲血管の圧排偏位を示すものが大部分である⁸⁾⁹⁾。いずれにしても腫瘍内部には充実性部分と嚢胞性部分がいろいろな程度で混在し、画像診断上さまざまな像を呈することより非機能性膵島腫瘍、膵嚢胞腫瘍、膵仮性嚢胞などと鑑別が困難となることも少なくない。

肉眼的には厚い線維性被膜を有し、内部には出血壊死、一部嚢胞形成を伴う腫瘍である。病理組織学的には腫瘍細胞は乳頭状増殖を示し、一部には cystic degeneration も認められる。本症の組織学的確定診断としては膵房細胞マーカーである α_1 -antitrypsin が陽性を示し、さらに電顕でチモゲン顆粒が証明されることが多いとされている²⁾¹⁰⁾。しかし、最近はこちらの陰性例^{11)~13)}や、NSE 染色陽性、電顕で神経分泌顆粒の見られるもの¹⁴⁾などの報告もあり、今後さらに検討されるべき問題点と思われる。自験例では、最初 H・E 染色で islet cell tumor の診断であったが、PAS 染色、 α_1 -antitrypsin 染色、NSE 染色、ラ島産生ホルモンに関する染色、電顕を行い、さらに臨床所見も考慮して再検討した結果、本症である可能性が強く示唆された。

本症の治療に関しては腫瘍摘出術のみで十分予後が期待できることより¹⁷⁾¹⁵⁾、若年女性の膵腫瘍に対しては本症の可能性も十分念頭において術前診断を慎重に行えば過大な手術侵襲を避けることも可能と思われる。しかし再発・転移例もまれではあるが報告されており^{16)~18)}、長期間の経過観察は必要と思われる。

文 献

- 1) Frantz VK: Tumor of the Pancreas. Atlas of Tumor Pathology Section 7 Fascicle 27 and 28, AFIP, Washington DC, 1959, p32-33
- 2) Klöppel G, Morohoshi T, John HD et al: Solid and cystic acinar cell tumor of the pancreas. Virchow Arch 392: 171-183, 1981
- 3) 戸谷拓二, 島田勝政, 渡辺泰宏ほか: Frantz 腫瘍の病理と臨床. 小児外科 19: 1097-1110, 1987
- 4) 藤岡照裕, 中田幸之介, 金 義孝ほか: 年長女児の

膵腫瘍 Solid and cystic tumor of the pancreas. 日小児外会誌 23: 1250-1259, 1987

- 5) 伊藤 寛, 堀内 格, 坂上充志ほか: 膵の Solid and cystic tumor の 1 例. 胆と膵 10: 687-694, 1989
- 6) Benjamin E, Wright DH: Adenocarcinoma of the pancreas of childhood. Histopathology 4: 87-104, 1980
- 7) Morrison DM, Jewell LD, McCaughey WTE et al: Papillary cystic tumor of the pancreas. Arch Pathol Lab Med 108: 723-727, 1984
- 8) 大場 寛, 加藤俊彦, 北中秀法ほか: 膵の Solid and cystic acinar cell tumor の画像診断. 日画像医誌 5: 1446-1453, 1986
- 9) Friedman AC, Lichtenstein JE, Fishman EK et al: Solid and papillary epithelial neoplasm of the pancreas. Radiology 154: 333-337, 1985
- 10) Bombi JA, Milla A, Badal JM et al: Papillary-cystic neoplasm of the pancreas. Cancer 54: 780-784, 1984
- 11) Compagno J, Oertel JE, Kremzer M: Solid and papillary epithelial neoplasm of the pancreas, probably of small duct origin: A clinicopathologic study of 52 cases. Lab Invest 40: 248-249, 1979
- 12) Hamoudi AB, Misugi K, Crosfeld JL et al: Papillary epithelial neoplasm in a child, report of a case with electron microscopy. Cancer 26: 1126-1134, 1970
- 13) Boor PJ, Swanson MR: Papillary-cystic neoplasm of the pancreas. Am J Surg Pathol 3: 69-75, 1979
- 14) Schlosnagle DC, Cambell WG: The Papillary and solid neoplasm of the pancreas. Cancer 47: 2603-2610, 1981
- 15) 山口 孝, 富岡 勉, 押淵 徹ほか: 腫瘍性膵嚢胞の臨床病理学的検討. 日消外会誌 19: 42-50, 1986
- 16) Cubilla AL, Fitzgerald PJ: Cancer of the pancreas (non endocrine) A suggested morphologic classification. Semin Oncol 6: 285-297, 1979
- 17) Lack EE, Levey R, Cassady JR et al: Tumors of the exocrine pancreas in children and adolescents, a clinical and pathologic study of eight cases. Am J Surg Pathol 7: 319-327, 1983
- 18) 高木雄二, 中尾 丞, 柴田和行ほか: 膵臓 Papillary tumor の 2 例. 癌の臨 31: 1737-1743, 1985

A Case Report of Solid and Cystic Tumor of the Pancreas

Takanori Shimura, Masaru Suzuki, Tsuyoshi Tsukamoto, Masao Sanada, Yoshihisa Ohtsubo,
Masao Hirata and Akio Konno*

Department of Surgery, Chiba Rosai Hospital

*Department of Pathology, do

A case of solid and cystic tumor of the pancreas is reported. The patient is a 24-year-old woman with the chief complaint of epigastric pain. All the laboratory tests were unremarkable, except elevation of Elastase-1. Ultrasonography, computed tomography and angiography revealed a cystic tumor in the pancreatic head. At laparotomy, the tumor was easily enucleated. Gross pathological examination revealed encapsulation, cystic degeneration and hemorrhagic necrosis. Microscopically, the tumor cells formed papillary configurations or microcystic structures. Immunocytochemical studies for neuron specific enolase and α_1 -antitrypsin were positive, but they were negative for pancreatic enzymes and hormones. Electron microscopic study did not reveal any particular cytoplasmic granules. These findings were compatible with solid and cystic tumor of the pancreas. The patient has been followed for 10 months with no evidence of recurrence.

Reprint requests: Takanori Shimura Department of Surgery, Chiba Rosai Hospital
2-16 Tatsumidai Higashi, Ichihara, 290 JAPAN
