

## 膵の solid and cystic tumor の 1 男性例

東北労災病院外科

須藤 幸一 大内 明夫 徳村 弘実  
今岡 洋一 山本 協二 松代 隆

膵の solid and cystic tumor (以下, SCT と略記) の 1 男性例を経験したので報告する. 症例は 67 歳の男性で前立腺肥大の精査中, 腹部 computed tomography (以下, CT と略記) 検査にて膵腫瘍を指摘され当科入院となった. 腹部 ultrasonogram, CT にて膵頭部に充実性部分の混在する嚢胞性腫瘍を認め, Endoscopic retrograde cholangiopancreatography では主膵管の中断像と総胆管の圧排狭窄像がみられた. 膵嚢胞性腫瘍の診断のもと膵頭十二指腸切除術を施行した. 腫瘍は被膜を有する 5.5×5.5×5cm の充実性部分と嚢胞状部分からなり, 充実性部分には出血壊死変性を認めた. 病理組織学的には腫瘍細胞は類円形小型の核を持ち, 充実シート状に増殖していた. 免疫組織化学的には  $\alpha_1$ -antitrypsin に対して陽性を示した. 以上の組織学的検索より SCT と診断した. 本症が若年女性優位に発症する原因は明らかではないが, 本邦報告 126 例 (自験例を含む) の文献的考察を加えて報告する.

**Key words:** solid and cystic tumor of the pancreas, pancreatoduodenectomy

### はじめに

膵の solid and cystic tumor (以下, SCT と略記) は若年女性に好発する比較的まれな悪性度の低い腫瘍であり, 特殊な形の膵腫瘍として注目されている. 最近その報告例も増加し, 高齢者例や男性例も散見されるようになった<sup>1)2)</sup>. 今回われわれは発症がまれな男性例を経験したので, 本邦報告 126 例の文献的考察を加えて報告する.

### 症 例

症例: 67 歳, 男性

主訴: 心窩部痛, 背部痛

家族歴: 父が胃潰瘍, 母が肺結核に罹患している.

現病歴: 9 年前より心窩部から背部にかけて疼痛があったが放置していた. 平成 3 年 2 月, 前立腺肥大症の治療のため近医を受診. 腹部 computed tomography (以下, CT と略記) 検査にて膵に腫瘍を指摘され, 精査目的にて同年 3 月 12 日当院に入院した.

入院時現症: 身長 152cm, 体重 48kg, 眼球結膜に黄疸なし, 眼瞼結膜に貧血なし. 腹部は平坦・軟で腫瘍などは触知せず.

入院時検査所見: 血液, 生化学検査では異常なく, 糖負荷試験では耐糖能異常を認め, pancreatic func-

tion diagnostant 試験では 51.1% と膵外分泌機能の低下がみられた. 腫瘍マーカー carcinoembryonic antigen, carbohydrate antigen 19-9 はいずれも正常範囲内であった (Table 1).

腹部単純 X 線検査: 第 3 腰椎の右側で膵頭部と思われる部位に孤状の石灰化像を認めた (Fig. 1).

腹部超音波検査: 膵頭部に径約 5cm の境界が比較的明瞭で内部エコーが嚢胞状の部分と充実性の部分が混在する腫瘍を認め, 一部では石灰化を伴い, また尾側主膵管では拡張が認められた (Fig. 2).

腹部 CT 検査: 膵頭部に径約 4cm の辺縁に石灰化

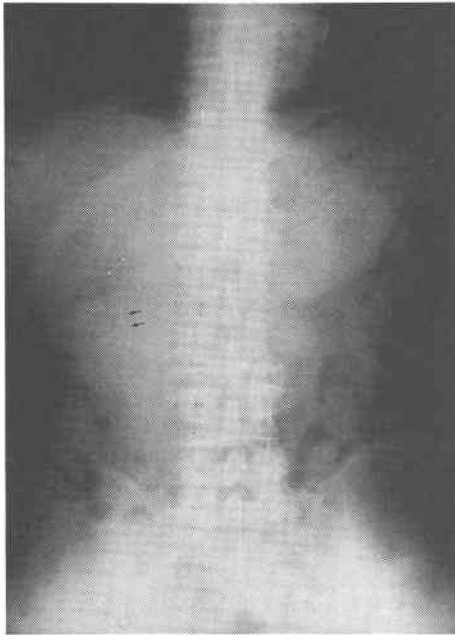
Table 1 Laboratory data on admission

WBC	8,000 /mm <sup>3</sup>	AIP	140 IU/ml
RBC	392 × 10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	$\gamma$ -GTP	16 IU/ml
Hb	12.3 g/dl	LAP	40 IU/ml
Ht	37.2 %	Amylase	104 IU/ml
PLT	26.3 × 10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	BUN	18 mg/dl
PT	100 %	Crea	0.9 mg/dl
APTT	45.1 sec.	Na	143 mEq/l
TP	6.5 g/dl	K	4.2 mEq/l
Alb	4.1 g/dl	Cl	108 mEq/l
ZTT	4.1 kunkel	CEA	1.9 ng/ml
T. Bil	0.6 mg/dl	CA19-9	14.9 U/ml
GOT	14 IU/ml	GTT (pre)	90 mg/dl
GPT	41 IU/ml	(120)	163 mg/dl
LDH	207 IU/ml	PFD	51.1 %

<1994年2月9日受理> 別刷請求先: 須藤 幸一

〒990-23 山形市飯田西 2-2-2 山形大学医学部  
第 1 外科

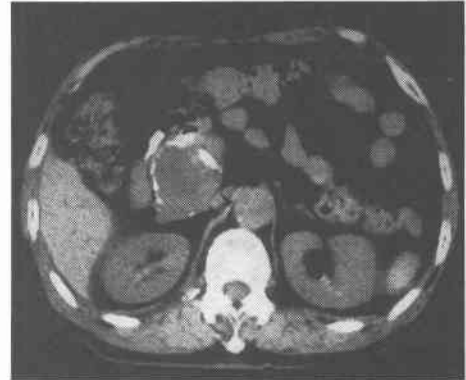
**Fig. 1** Plain abdominal X-ray film. Arched calcification was seen in the right side of the third lumbar vertebra.



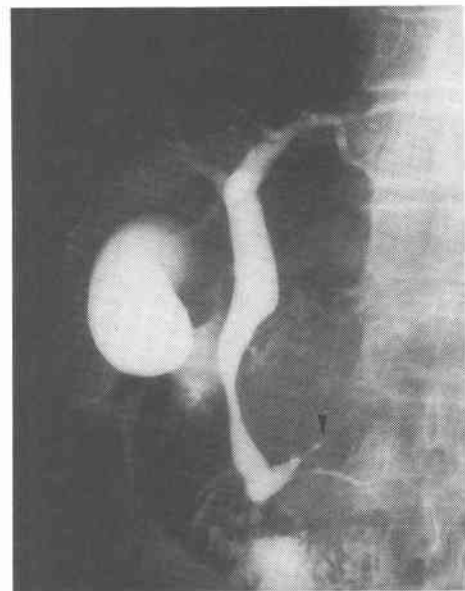
**Fig. 2** Abdominal ultrasonogram. The tumor was located in the head of the pancreas, and was composed of solid and cystic areas. Distal pancreatic duct was much dilatation.



**Fig. 3** Abdominal computed tomography. Low density mass with calcification was located in the head of the pancreas.



**Fig. 4** Endoscopic retrograde cholangiopancreatography. The main pancreatic duct was complete stenosis, and the common bile duct was stenotic and pressed to the right side.



を伴う円形の low density mass を認めた。内部の density は不均一であった (Fig. 3)。

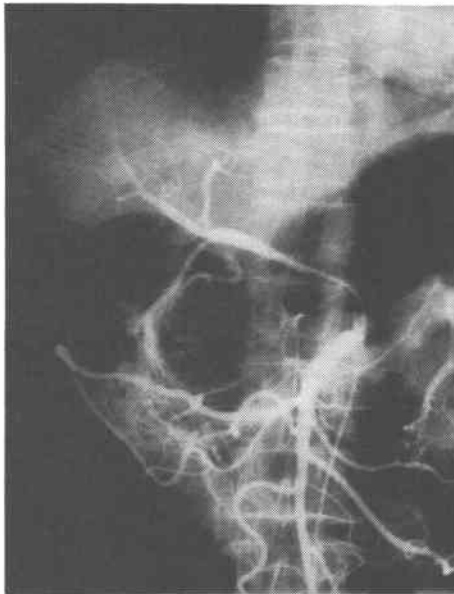
Endoscopic retrograde cholangiopancreatography 検査：主膵管の中断像と下部胆管の5.5cm にわたる狭窄像を認めたが、胆管壁は滑らかで外部からの圧排が考えられた (Fig. 4)。

総肝動脈造影検査：胃十二指腸動脈は右側に圧排さ

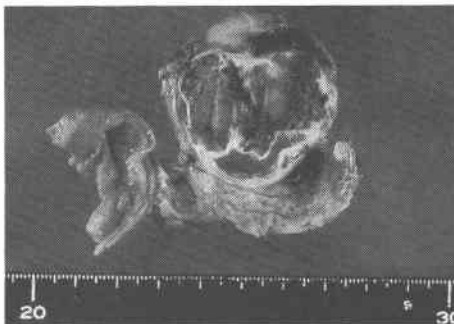
れていたが、encasement や腫瘍濃染像は認められなかった (Fig. 5)。以上の所見より膵頭部嚢胞性腫瘍の術前診断のもとに平成3年4月26日膵頭十二指腸切除術を施行した。

手術所見：膵頭部に5.5×5.5×5cmの軟骨様に硬い腫瘍を認め、膵前方被膜への浸潤を認めたが、リンパ節転移は認められなかった。

**Fig. 5** Selective common hepatic arteriogram. The gastroduodenal artery was stretched, and tumor stain and encasement was not seen.



**Fig. 6** Gross photograph. The tumor was encapsulated and was composed of solid and cystic areas with local necrosis and bleeding.

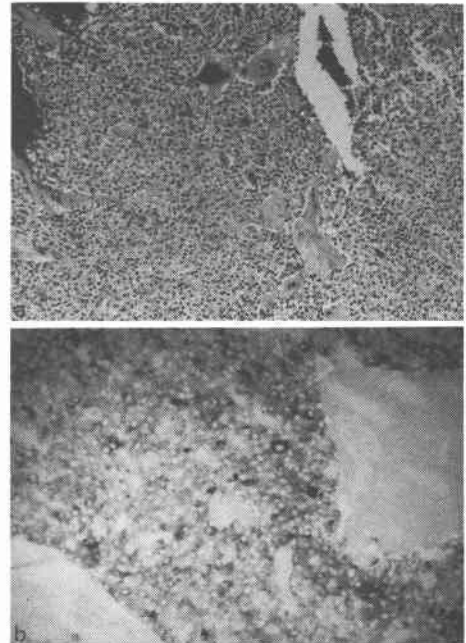


切除標本肉眼所見：石灰化を伴った線維性被膜と隔壁で境される充実性部分と嚢胞状部分からなり、充実性部分には出血壊死部位の混在が認められた。また嚢胞内にはチョコレート様の泥状物が認められた (Fig. 6)。

病理組織学的所見：腫瘍は線維性被膜によって膵実質と境されていたが、ごく一部において被膜外浸潤が認められた。腫瘍細胞は核分裂像に乏しく類円形小型の核を持ち淡い好酸性の胞体を有し、毛細血管周囲に充実シート状に増殖していた (Fig. 7a)。

**Fig. 7** Histological and immunohistological findings.

a) The tumor cells had small and oval nucleus with well developed eosinophilic cytoplasm, and showed sheet-like proliferation ( $\times 100$ ). b) Positive immunocytochemical staining for  $\alpha_1$ -antitrypsin (PAP,  $\times 300$ ).



免疫組織化学的所見：腫瘍細胞内に  $\alpha_1$ -antitrypsin 反応陽性顆粒を認めた (Fig. 7b)。しかし、Insulin, Glucagon, Somatostatin, Pancreatic polypeptide, Vasoactive intestinal peptide の各種ホルモンや Chromogranin, Grimelius 染色は陰性であった。なお、ホルマリン固定後の戻し電顕写真では固定状態が不良のため詳細な所見は得られなかった。以上の所見より、本腫瘍は膵頭部から生じた SCT と診断された。患者は術後 9 カ月の現在再発の徴候なく生存中である。

#### 考 察

膵の solid and cystic tumor は若年女性に発症するまれな腫瘍として、1981年 Klöppel ら<sup>3)</sup>がその腫瘍概念を発表して以来、臨床的形態的に特異な膵外分泌系腫瘍として注目されている。近年、報告例の増加とともに高齢者例や男性例も散見されるようになってきた。

永井ら<sup>4)</sup>の87例の本邦報告例と1992年12月までに検索しえた SCT と考えられる126例 (自験例 1 例を含

む)の本邦報告例を集計した。性別は男性10例(7.9%)、女性116例(92.1%)と圧倒的に女性に多く、初診時年齢は男性10~67歳(平均 $32.4 \pm 21.6$ 歳)、女性8~71歳(平均 $29.0 \pm 16.0$ 歳)であった。年齢分布では男女とも10歳代が最も多く、男性40%、女性37.1%であった。一方、50歳以上は男性20%、女性12.9%にすぎなかった。主訴は女性では上腹部痛が48例(41.4%)、腹部腫瘤が45例(38.8%)と多く、男性では上腹部痛が6例(60%)に対し腹部腫瘤は1例(10%)にすぎなかった。また、全く症状がなく検診の腹部単純X線や腹部超音波検査、他疾患の検索中に偶然に発見された症例が男女とも約20%を占めた。画像診断上は男女間に相違は認められず、石灰化像は記載の明らかな男性5例中3例(60%)、女性58例中47例(91.0%)にみられたが、諸家の報告では25~30%とされている<sup>5)~7)</sup>。また、石灰化のみられた症例の平均年齢は男性 $50 \pm 14.9$ 歳、女性 $35.2 \pm 14.4$ 歳と高年齢層に多かった。占居部位は男性では頭部1例、体部2例、体尾部2例、尾部4例で、女性では頭部40例、体部21例、体尾部20例、尾部29例と発生部位に偏りはなかった。腫瘍の大きさは最大径で男性では2.5~11cm(平均 $6.1 \pm 2.5$ cm)、女性では1.6~20cm(平均 $8.0 \pm 3.7$ cm)とやや女性で大きい傾向にあった。治療としては男女とも手術が基本になされており、全体では膵頭部に発生した41例中21例に膵頭十二指腸切除術が施行され、体部、体尾部、尾部に発生した79例中58例に膵体尾部切除術が施行された。腫瘍のみの摘出は29例(30.2%)で、全体での切除率は96.8%と非常に高率であった。悪性を示す所見としてはリンパ節転移例はなく、被膜浸潤7例(男1、女6)、膵実質浸潤6例(男1、女5)、門脈浸潤1例(女1)、肝転移4例(女4)、腹膜播種1例(女1)であった。これらの症例の平均年齢は $39.8 \pm 14.8$ 歳と他症例に比べて高齢であり、高年齢症例の術後においては厳重なfollow upが必要と考えられた。予後は126例中4例(いずれも女性)が死亡しており、他病死した1例をのぞき3例が肝転移もしくは腹膜播種で死亡している。組織学的、免疫組織学的には男女間に相違はなく、腫瘍は比較的厚い被膜をもち、剖面所見では腫瘍内部に出血、変性、壊死を認め2次的に嚢胞状となる。腫瘍細胞は類円形小型の核と好酸性の胞体を有し、毛細血管周囲に充実性、乳頭状に増殖する。核分裂像は少なく、PAS陽性顆粒を認めることがある。免疫組織学的には $\alpha_1$ -antitrypsin陽性例が多く、記載の明らかなものでは男性6例中5例、女性59例中56例で陽性で

**Table 2** Literature review of solid and cystic tumor of the pancreas

A. Clinical

Sex		Male	Female
Number(cases)		10	116
Age(years)		10~67	8~71
	average(years)	$32.4 \pm 21.6$	$29.0 \pm 16.0$
	0-9 (cases)		3
	10-19(cases)	4	43
	20-29(cases)	1	21
	30-39(cases)	2	18
40-49(cases)	1	15	
50- (cases)	2	15	
Subjective symptom (cases)	abdominal mass	1	45
	abdominal pain	6	48
	no symptom	2	20
Calcification(cases)		3	47
Location(cases)	head	1	40
	body	2	22
	body and tail	2	20
	tail	4	29
Size(cm)		2.5~11	1.6~20
	average(cm)	$6.1 \pm 2.5$	$8.0 \pm 3.7$
Prognosis(cases)	dead		4
	(liver metastasis : 3, other disease : 1)		

B. Pathological

positive/negative		+	-	+	-
Immunohistochemical (cases)	$\alpha_1$ -antitrypsin	5	1	56	7
	NSE	1		19	3
	hormones	0	4	0	29
Electron microscopic (cases)	zymogen granules	3	1	24	15
	NSG		1	2	9

あった。Neuron-specific enolaseは男性1例中1例、女性22例中19例が陽性で、Grimelius染色では女性23例中7例が陽性であった。また、Insulin, Glucagon, Somatostatinなど膵ラ島由来の各種ホルモンは検索された男性4例、女性29例いずれにおいても陰性であった。電子顕微鏡的にも男女間に相違はなく、Zymogen顆粒は全体で42例中27例に、Neurosecretory granuleは12例中2例に認められた(**Table 2**)。

本症が若年女性優位に発症する病態に関して、Ladanyiら<sup>8)</sup>は腫瘍内のestrogen, progesterone receptorが正常膵組織内より有意な増加を示すことからホルモン依存性を指摘している。しかし、Klöppelら<sup>9)</sup>は若年男性にも発症することやestrogen, progesterone過剰分泌による内分泌異常例のないこと、さらにreceptorの濃度やその存在の有無に関しても報告に

差がみられることを理由に女性ホルモンの関与を否定している。

今回の文献的考察における男女間の臨床像の比較では、画像診断上や組織学的には男女間に相違はみられなかったが、男性例は女性例に比べ比較的高齢者の割合が多く、腫瘍径も小さい傾向が認められた。また、転移死亡例は女性例にしか認められないことなどから、男性例では腫瘍の発育や進行が女性例に比べ緩徐であることが示唆された。さらに乳癌を併発した症例も報告されており<sup>10)</sup>、今回の結果はむしろ Ladanyi らのホルモン依存説を支持するものと思われる。しかし、ホルモ的な検索に関しては新鮮標本における estrogen, progesterone receptor を測定した症例はほとんどみられず、今後の課題と思われる。一方、組織発生に関してはいまだ統一した見解は得られていないが、膵外分泌系、内分泌系の両方に分化しうる primordial cell 由来と考えられており<sup>11)</sup>、免疫組織学的検討の結果は分化の多様性を示しているものと思われる。

本症の治療においては、手術による根治度は高く非常に良好な成績が得られているが、転移死亡例も少なからずみられており、膵癌に準じた術式の選択が望まれる。

なお、本論文の要旨は第39回日本消化器外科学会総会(1992年2月、神戸市)において発表した。

#### 文 献

- 1) 小西二三男, 松能久雄: 膵真性嚢胞の病理診断・分類の問題点—solid and cystic tumor および類縁疾患. 胆と膵 11: 25—31, 1990

- 2) 永井英司, 飛松正則, 平野達也ほか: Small solid and cystic tumor of the pancreas の 1 男性例. 胆と膵 12: 567—571, 1991
- 3) Klöppel G, Morohoshi T, John HD et al: Solid and cystic acinar cell tumor of the pancreas. Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol 392: 171—183, 1981
- 4) 永井秀雄, 森 俊幸, 和田祥之ほか: 膵の Solid and Cystic Tumor. 外科 51: 364—373, 1989
- 5) 出射秀樹, 中本光春, 裏川公章ほか: 膵の solid and cystic tumor の 1 例—本邦60例の検討を含めて—。胆と膵 11: 1557—1565, 1988
- 6) 新井 信, 渡辺伸一郎, 神津忠彦ほか: 陶器様胆嚢とまぎらわしい石灰化を示した膵 solid and cystic tumor (SCT) の 1 例. 膵臓 5: 107—114, 1990
- 7) 中島信久, 知名 保, 真喜屋実佑ほか: 膵の solid and cystic tumor の 1 例. 日臨外医会誌 53: 424—429, 1992
- 8) Ladanyi M, Mulay S, Arseneau J et al: Estrogen and progesterone receptor determination in the papillary cystic neoplasm of the pancreas. Cancer 60: 1604—1611, 1987
- 9) Klöppel G, Maurer R, Hofmann E et al: Solid-cystic (papillary-cystic) tumor within and outside the pancreas in men: Report of two patients. Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol 418: 179—183, 1991
- 10) 上野正義, 今川教史, 八倉萬之助ほか: 乳癌, 胃癌を併発した膵の solid and cystic tumor の 1 例. 日消外会誌 25: 151—155, 1992

### Solid and Cystic Tumor of the Pancreas in a Male

Koichi Sutoh, Akio Ouchi, Hiromi Tokumura, Yoichi Imaoka, Kyoji Yamamoto and Takashi Matsushiro  
Department of Surgery, Touhoku-Rosai Hospital

A male case of solid and cystic tumor of the pancreas was experienced. The patient was 67 years old. Tumor was detected incidentally on abdominal computed tomography (CT) for further examination of prostatic hypertrophy. Abdominal ultrasonogram and CT showed cystic tumor in the head of the pancreas. Endoscopic retrograde cholangiopancreatography showed complete stenosis of the main pancreatic duct. Pancreatoduodenectomy was performed. On the cut surface, the tumor was composed of solid and cystic lesions, with necrotic and hemorrhagic materials. Microscopically, the tumor cells had small and oval nuclei, and showed sheet-like proliferation. Immunocytochemical staining (PAP-method) for  $\alpha_1$ -antitrypsin was positive. From these findings the diagnosis of solid and cystic tumor of the pancreas was made. A total of 126 cases, including this case, in the Japanese literature were reviewed to compare clinical differences between males and females.

**Reprint requests:** Koichi Sutoh First Department of Surgery, Yamagata University School of Medicine  
2-2-2 Iidanishi, Yamagata, 990-23 JAPAN