

症例報告

## 脾温存尾側膵切除術を施行した小児の 膵 solid cystic tumor の 1 例

名古屋掖済会病院外科

山中 秀高 西垣 英治 岡島 明子 河合 徹  
杉浦 友則 川井 覚 平松 聖史 北川 喜己  
河野 弘 松浦 豊

症例は 13 歳の女性。左上腹部腫瘍で入院。腹部超音波および CT 検査で径 80mm, 内部不均一な膵尾部腫瘍を認め、腹部 MRI 検査の T2 強調画像で高信号、腹部血管造影検査で乏血管性であった。脾動脈浸潤はないが脾静脈は閉塞し、左胃大網静脈を介する側副血行を認めた。ERCP 検査で体尾部主膵管は圧排、屈曲のみで途絶はなかった。膵尾部原発 solid cystic tumor と診断し手術を施行した。腫瘍は皮膜を有し周囲臓器浸潤はないが、脾動静脈の炎症性癒着を認め、脾静脈は器質化閉塞し、左胃大網静脈を介する側副血行を認めた。脾温存脾静脈合併尾側膵（尾部）切除術を施行した。摘出標本で 90 × 90 × 85mm, 小分葉状で間隙形成を認めたが嚢胞はなく、病理組織および免疫染色で solid cystic tumor と確診された。自験例は良性だが、脾静脈の閉塞、側副血行形成を認めており、診断、術式を考える上で示唆に富むまれな症例であった。

### はじめに

膵 solid cystic tumor (以下, SCT と略す) は血管閉塞をきたすことがほとんどない<sup>1,2)</sup>。今回、脾温存尾側膵切除術を施行した、脾静脈閉塞を伴う小児の膵尾部原発膵 SCT の 1 例を、術式の検討を加え報告する。

### 症 例

患者: 13 歳, 女性

主訴: 腹部腫瘍

家族歴, 既往歴: 特記事項なし。

現病歴: 左上腹部腫瘍に気づき, 入院した。

入院時現症: 貧血, 黄疸はなかった。左上腹部季肋下 4 横指におよぶ弾性硬, 境界明瞭, 可動性や圧痛のない腫瘍を触知した。

入院時検査成績: 血液検査上, 異常なし。

腹部超音波検査: 膵尾部に径 75mm, 内部不均一な等エコー腫瘍を認めた (Fig. 1)。

腹部 CT 検査: 膵尾部に径 80mm, 内部モザイク状, 造影されない, 周囲臓器と境界明瞭な low density tumor を認めた。脾静脈閉塞と左胃大網静脈拡張を認め

Fig. 1 Abdominal US showed heterogeneous iso-echoic mass, sized 75mm in diameter on the pancreatic tail. Spleen and left kidney were compressed.



た (Fig. 2)。

MRI 検査: 腫瘍は T2 強調画像で胃と境界明瞭で、内部モザイク状の高信号を示した。

Fig. 2 Abdominal CT showed mosaic pattern, little enhanced low density tumor, sized 80mm in diameter on the pancreatic tail. No main pancreatic duct dilatation was detected. The tumor was demarcated from the spleen, the left kidney and the colon. Splenic vein obstruction and left gastroepiploic vein dilatation were recognized.

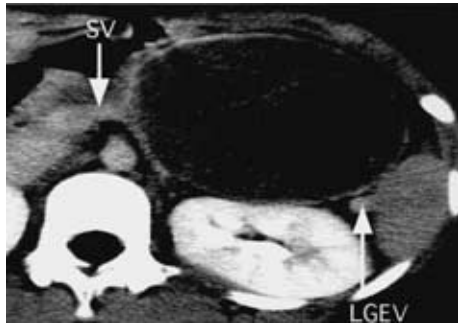


Fig. 3 ERCP showed main pancreatic body and tail duct compression and flexion to right dorsal side without obstruction, interruption nor communication to the tumor.



上部消化管内視鏡検査：胃体部後壁に壁外性腫瘍による膨隆と噴門部静脈拡張を認めた。

注腸造影検査：脾彎曲部に圧排像を認めた。

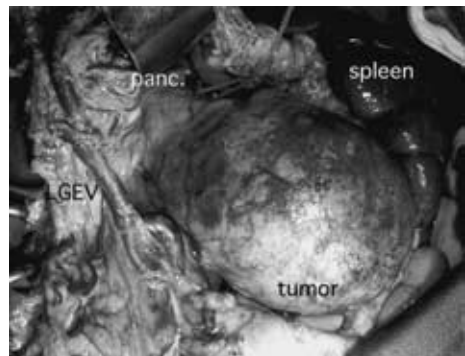
ERCP 検査：体尾部膵管が圧排屈曲されるが途絶や腫瘍との交通はなかった (Fig. 3)。

腹部血管造影検査：背側膵動脈支配の乏血管性腫瘍で、脾動脈浸潤はなく (Fig. 4a)、脾静脈閉塞、左胃大

Fig. 4 (a) Abdominal angiography showed hypovascular tumor fended by dorsal pancreatic artery. Splenic artery was compressed without encasement. Splenic vein was occluded and collateral blood flow to superior mesenteric vein via left gastroepiploic vein was constructed (b)



Fig. 5 Elastic hard pancreatic tail tumor with fibrous capsule was recognized intraoperatively. The tumor showed no invasion to around organ. Spleen artery and vein adhered to the tumor, which confirmed inflammation by intraoperative pathological examination. Spleen preserving distal pancreatectomy with splenic vein resection was performed.



網静脈から上腸間膜静脈への側副血行を認めた (Fig. 4b)。

以上より、悪性化の可能性のある脾尾部原発 SCT と診断し、手術を施行した。

術中所見：脾尾部に周囲臓器浸潤のない境界明瞭、線維性被膜を有する弾性硬の腫瘍を認めた。脾動静脈は癒着し、迅速病理で炎症性だが、脾静脈は器質化閉塞し、左胃大網～中結腸静脈より上腸間膜静脈へ側副

Fig. 6 Pncreatography of resected specimen showed neither tumor invasion nor communication to main pancreatic duct.

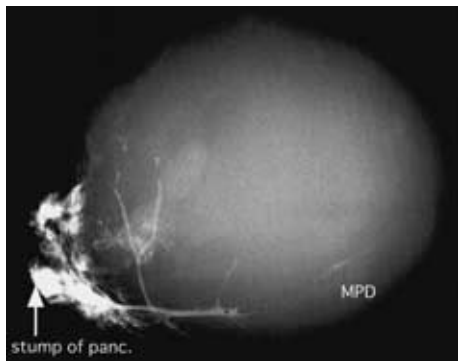
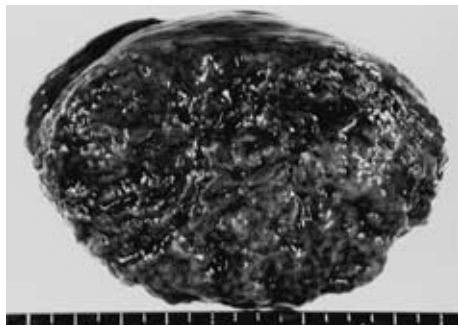


Fig. 7 On resected specimen, tumor 90 × 90 × 85mm in diameter has fibrous capsule and on cut surface, tumor showed bright brown color, fragile and small lobular pattern with slit formation but without cystic area.



血行を認めた (Fig. 5)。脾動脈, 側副血行, 脾温存脾静脈合併尾側脾 (尾部) 切除術を施行した。

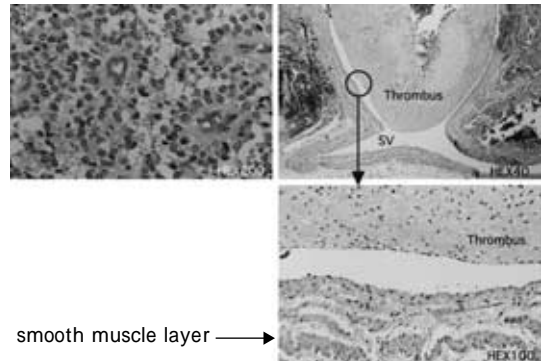
切除標本膵管造影: 腫瘍の膵管浸潤や膵管との交通はなかった (Fig. 6)。

切除標本: 90 × 90 × 85mm, 線維性被膜を有し, 剖面は褐色調, 脆弱, 小分葉状で間隙形成を伴うが囊胞部分はなかった (Fig. 7)。

病理組織: 細血管性間質と小型均一な多角細胞の偽乳頭状充実性増殖を認め (Fig. 8a), 脾静脈は器質化血栓で閉塞し, 内皮は剥脱し, 平滑筋層が散在していた (Fig. 8b, c)。免疫染色: PAS, クロモグラニン染色陰性, α1-アイチトリブシン染色弱陽性であった。

以上より, 脾 SCT, 脾癌取扱い規約に準じ, TS<sub>4</sub>, 結節型, s<sub>0</sub>, rp<sub>0</sub>, r(-), pv<sub>0</sub>, a<sub>0</sub>, CH<sub>0</sub>, DU<sub>0</sub>, PL(-),

Fig. 8 Small regular polygonal cells proliferated pseudopapillary, solitary for nest formation with capillary interstitial tissue and no necrosis was occurred on microscopically ( a ) Splenic vein was obstructed by organized thrombus and endothelium were exfoliated and smooth muscle layer were scattered ( b, c )



P<sub>0</sub>, H<sub>0</sub>, stage II と確診した。

考 察

脾 SCT は全脾腫瘍中 0.2 ~ 2% と比較的まれ<sup>3)</sup>で, 年齢は 8 ~ 71 歳, 平均 26 歳で 30 歳以下が 75% 以上, 15 歳以下の小児が約 37% である<sup>1)-6)</sup>。小児例は 98% が女性で, 無症状が多く, 時に腹部腫瘍, 腫瘍の圧迫あるいは破裂による腹痛が認められる<sup>1)2)3)-7)</sup>。腫瘍径は平均 80mm で SCT 全体の 100mm に比べやや小さい。発生部位に差はない<sup>3)-6)</sup>。特異的な血液検査はない。腹部 US, CT 検査で厚い被膜を有し, 内部不均一, 脾外性発育を示し, 石灰化を伴うことがある<sup>7)-9)</sup>。ERCP 検査で膵管, 胆管の圧排のみで浸潤はほとんどない<sup>1)2)3)10)</sup>。血管造影検査で 80% が乏血管性で血管を圧排伸展するが浸潤や閉塞はほとんどない<sup>1)2)3)11)</sup>。治療は腫瘍遺残で再発するため完全摘出術が必要だが, 小児の悪性化はなく, リンパ節転移がまれなため系統的脾切除術やリンパ節郭清は必要ない<sup>4)</sup>。しかし実際は腫瘍核出術などの機能温存縮小手術は小児で多いが, 53% は頭部原発で<sup>4)</sup>, 逆に原発部位別で頭部は PD や PpPD を避けた縮小手術が 73% と多いが, 体および尾部はおのおの 50%, 38% と少なく, 逆に脾合併尾側脾切除術が 44%, 62% と多く (Table 1)<sup>5)8)</sup>, overwhelming post splenectomy infection や sepsis 併発への考慮が不十分であった。化学療法は無効で, 手術不能や腫瘍遺残例は放射線感受性を若干有するため放射線療法が行われる<sup>12)3)</sup>。予後は発育が緩徐で浸潤傾向がない

Table 1 SCT of 15 year old and under

Location of tumor											
pancreas head				pancreas body				pancreas tail			
age (y.o.)	sex	size (mm)	operation#	age (y.o.)	sex	size (mm)	operation#	age (y.o.)	sex	size (mm)	operation#
11	F	100	PD	9	F	70	PD	9	F	160	DP + S
13	F	90	PD	14	F	80	DP + S	15	F	105	DP + S
12	F	40	PD	15	F	117	DP + S	14	F	70	DP + S
12	F	70	PD	9	F	80	DP + S	12	F	90	DP + S
13	F	90	PD	14	F	100	DP + S	13	F	140	DP + S
10	F	110	PpPD	11	F	50	DP + S	12	M	70	DP + S
11	F	100	E	12	F	50	DP + S	14	F	70	DP + S
14	F	50	E	12	F	140	DP + S	15	F	110	DP + S
14	F	?	E	12	F	40	DP + S	11	F	90	DP
15	F	60	E	14	F	?	DP	11	F	?	DP
8	F	90	E	11	F	90	DP	15	F	105	DP
12	F	55	E	13	F	140	DP	*13	F	90	DP
12	F	70	E	11	F	80	DP	11	F	100	E
13	F	60	E	13	F	110	DP				
13	F	100	E	11	F	?	E				
12	F	55	E	13	F	110	E				
14	F	50	E	12	F	50	E				
14	F	80	E	9	F	55	E				
9	F	70	E								
12	F	40	E								
13	F	100	E								
13	F	60	E								

\* our case # PD = pancreatoduodenectomy DP = distal pancreatectomy S = splenectomy  
E = enucleation of the tumor

ため極めて良好だが<sup>15)</sup>, 40歳以上の悪性例で予後不良の報告もある<sup>14)</sup>。病理組織は多角細胞の偽乳頭状増殖による固形部分と出血壊死による嚢胞部分の混在が特徴で, 石灰化を伴うことが多い<sup>12)</sup>。免疫染色は $\alpha$ 1-アンチトリプシンとPAS染色陽性, グロメリウス, 膵内分泌ホルモン, ソマトスタチン染色陰性が特徴で腺房細胞へ分化する幼若細胞と考えられた<sup>16)</sup>が, NSE, チモーゲン顆粒が時に陽性で multipotential stem cell あるいは primordial cell 由来とも考えられている<sup>6)</sup>。鑑別疾患は膵芽腫, 膵島腫瘍である。膵芽腫は5歳前後に多く性差がない, 膵管, 胆管, 脈管浸潤が高度, 病理組織で重層扁平上皮または類上皮様体 (squamous body) を有する, などで鑑別され予後不良である<sup>8)</sup>。膵島腫瘍は中高年に多く, ホルモン産生腫瘍が多く血中ホルモン上昇, 血管造影で富血管性, 免疫組織でグロメリウスや膵内分泌ホルモンまたはソマトスタチン染色陽性, などで鑑別され予後不良例もある<sup>17)</sup>。

自験例は膵 SCT の典型例だが, 脾静脈の完全閉塞と側副血行を認めた。これは血管浸潤を伴う悪性化した高齢成人の報告が1例あるが<sup>19)</sup>, 非悪性例は自験例のみで, 術前に悪性を否定できなかった。しかし術中, 炎症性癒着 + 器質化閉塞と診断でき脾温存尾側膵切除術を行った。すなわち, 良性でも脾静脈を閉塞し, 無症状のまま側副血行を形成することを念頭に置き, 小児悪性例はないため体尾部例も過大侵襲を避けた脾温存術式を心掛けることが肝要で, 自験例は腫瘍遺残や悪性化も無く, 妥当な術式であったと思われた。

#### 文 献

- 1) 胡井 智, 川本克久, 光藤章二ほか: 膵の solid and cystic tumor (SCT) の 1 例 自験例及び本邦報告例の検討. Gastroenterol Endosc 32: 1692-1701, 1990
- 2) 佐藤恭久, 戸谷拓二, 渡辺泰宏ほか: Frantz 腫瘍. 小児外科 28: 47-52, 1996
- 3) 加藤真吾, 寺畑信太郎, 伊藤和郎ほか: 胆管浸潤を来した閉塞性黄疸で発症した膵 solid and cystic tumor (SCT) の 1 例. 日消病会誌 95: 60-65,

- 1998
- 4) 桂巻 正, 木村雅美, 三神俊彦ほか: 膵の solid and cystic tumor-2 自験例を含む 126 手術例の臨床病理学的検討 . 日消外会誌 26 : 2864 2868, 1993
- 5) 飯島敏彦, 新田昭彦, 堀内 啓ほか: 骨化を伴った膵の solid and cystic tumor の 1 例 本邦 45 例の予後調査も含めて . 日消病会誌 85 : 1123 1127, 1988
- 6) 戸谷拓二, 島田勝政, 渡辺泰宏ほか: Frantz 腫瘍の病理と臨床 少女および若年女性に好発する solid and cystic tumor of the pancreas の 97 例から . 小児外科 19 : 1097 1110, 1987
- 7) 諸星利男, 神田実喜男, Kloppel G : Frantz Solid and cystic tumor 最近の概要について . 胆と膵 9 : 1501 1509, 1988
- 8) 諸星利男, Kloppel G, 神田実喜男: 若年者膵腫瘍の特異性 solid and cystic acinar cell tumor を中心に . 医のあゆみ 120 : 235 242, 1982
- 9) 広瀬哲也, 今泉俊秀, 鈴木 衛ほか: 膵腫瘍の画像診断・5-Solid and cystic tumor . 消外 16 : 243 256, 1993
- 10) 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
- 11) 新井葉子, 山中恒夫, 玉城吉郎ほか: 嚢胞成分のない膵 solid and cystic tumor の 1 症例 本邦報告例の検討を加えて . 日消病会誌 91 : 1464 1468, 1984
- 12) 松能久雄, 小西二三男, 石川義麿ほか: Papillary-cystic neoplasm of the pancreas の臨床病理学的検討 . 胆と膵 7 : 1293 1302, 1986
- 13) Fried P, Cooper J, Balthazer E et al : A role of radiotherapy in the treatment of solid and papillary neoplasms of the pancreas. Cancer 56 : 2783 2785, 1985
- 14) Horisawa M, Niinomi N, Sato T et al : Frantz 's tumor ( solid and cystic tumor of the pancreas ) with liver metastasis : successful treatment and long-term follow-up. J Pediatr Surg 30 : 724 726, 1995
- 15) 岩井和浩, 石倉 浩, 大沢昌平ほか: 51 歳女性の solid and cystic tumor ( SCT ) of the pancreas の 1 例 . 胆と膵 13 : 193 197, 1992
- 16) 喜納 勇, 新井富生: 膵の solid and cystic acinar cell tumor ( SCAT ) 特にその組織発生についての考察 . 胃と腸 21 : 767 773, 1986
- 17) Kloppel G, Morohoshi T, John HD et al : Solid and cystic acinar cell tumor of the pancreas : A tumor in young women with favourable prognosis . Virchows Arch ( Pathol Anat ) 392 : 171 183, 1981
- 18) Kloppel G : Pancreatic non-endocrine tumours. Edited by Kloppel G, Heitz PU. Pancreatic pathology. Churchill Livingstone, London, 1984, p280 284
- 19) Dales RL, Garcia JC, Davis RS : Papillary-cystic carcinoma of the pancreas. J Surg Oncol 22 : 115 117, 1983

Infant Solid Cystic Tumor of the Pancreas Conducted Spleen preserving  
Distal Pancreatectomy-Report of a Case-

Hidetaka Yamanaka, Eizi Nishigaki, Akiko Okazima, Tohru Kawai, Tomonori Sugiura,  
Satoru Kawai, Kiyoshi Hiramatsu, Yoshimi Kitagawa, Hiroshi Kono and Yutaka Matsu-ura

Department of Surgery Nagoya-ekisaikai Hospital

A 13-year-old girl admitted for a left-upper abdominal mass was found in abdominal ultrasonography and computed tomography to have a heterogeneous mass on the tail of the pancreas, 80mm in diameter. Abdominal magnetic resonance imaging showed high intensity in T2 weighted imaging, and abdominal angiography showed a hypovascular tumor without invasion to the splenic artery. We found splenic vein obstruction and collateral blood flow via the left gastroepiploic vein. Endoscopic retrograde cholangiography and pancreatography showed compression and flexion of the main pancreatic duct of pancreatic body and tail without interruption. She was operated on to remove a solid cystic tumor of the pancreatic tail. The capsulated tumor showed no other organ invasion but the splenic artery and vein were adhered tightly due to inflammation, and collateral blood flow via the left gastroepiploic vein involved obstruction of the splenic vein. We conducted spleen-preserving distal pancreatectomy with splenic vein resection. The resected specimen was a 90 × 90 × 85mm tumor with a small lobular pattern and slit but without cystic area. The tumor was confirmed to be solid cystic tumor in microscopically and immunostaining. Such a case is rare and offers insights into diagnosis and surgical procedures because, despite being benign, the tumor obstructed the splenic vein and caused collateral blood flow formation.

Key words : solid cystic tumor of the pancreas, splenic vein obstruction, collateral blood flow

[ Jpn J Gastroenterol Surg 35 : 1605 1609, 2002 ]

Reprint requests : Hidetaka Yamanaka Department of Surgery, Nagoya Ekisaikai Hospital  
4 66 Syonen-cho, Nakagawa-ku, Nagoya-shi, 454 8502 JAPAN