

腹腔鏡補助下膵部分切除術を施行した膵内副脾 epidermoid cyst の 1 例

岐阜大学第 1 外科, 同 臨床検査医学*

阪本 研一 広瀬 一 山田 卓也 安村 幹央
松尾 浩 島本 強 仁田 豊生 水谷 知央
二村 直樹 下川 邦泰*

膵嚢胞性腫瘍を疑い腹腔鏡下膵切除術を施行したところ, epidermoid cyst を伴った膵内副脾と判明した 1 例を経験した. 症例は 40 歳の女性. 症状はなく, 血液検査で CA19-9 高値, 腹部 CT で膵尾部腫瘍性病変を指摘された. CA19-9 は 71.5U/ml と高値で, 病変は境界明瞭な長径 20mm 大で嚢胞部分と実質部分からなり, 嚢胞壁の一部に壁在結節様の部分を認めた. 超音波内視鏡で腫瘍内部は均一な低エコーで, MRCP と ERCP で膵管の狭窄や拡張像はなく, 血管造影では均一な腫瘍濃染像を認めた. 膵粘液性嚢胞腫瘍を疑い, ハンドアシスト法を用いた腹腔鏡補助下膵温存膵尾部部分切除術を施行した. 腫瘍は暗赤色と黄褐色の 2 つの成分から構成されていた. 前者は脾組織, 後者は明らかな角化像および皮膚附属器成分を認めない重層扁平上皮で被覆された嚢胞で, epidermoid cyst を伴った膵内副脾と診断した.

はじめに

画像診断法の進歩にともない, 膵嚢胞性病変が偶然発見される機会が多くなりつつある. 膵粘液性嚢胞腫瘍を疑い, 腹腔鏡補助下膵温存膵尾部部分切除術を施行したところ, epidermoid cyst を伴った膵内副脾と判明した 1 例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する.

症 例

患者: 40 歳, 女性

主訴: 特になし.

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 健診で血清 CA19-9 の高値を指摘された. 腹部 CT を施行されたところ膵尾部に腫瘍性病変を発見され, 精査目的で当院に紹介された.

入院時現症: 結膜に黄疸・貧血なく, 腹部は平坦・軟で, 腫瘍を触知しなかった.

入院時検査所見: 血液生化学検査では特記すべき所見はなく, 腫瘍マーカーは CA19-9 が 71.5U/ml (正常値: 35U/ml 以下) と高値で, CEA, Elastase-I, DUPAN-2 はいずれも正常範囲内

であった.

腹部 CT 所見: 膵尾部に 20×18mm 大の境界明瞭な腫瘍を認めた. 腫瘍は単純で膵実質よりやや低濃度で, 造影では門脈相と平衡相で辺縁が造影される嚢胞性部分と, 門脈相と平衡相で内部がわずかに造影される充実性部分により構成されていた.

腹部 MRI 所見: 腫瘍の嚢胞性部分は造影 T1 強調像で低信号, T2 強調像で高信号を示し, 実質性部分は造影 T1 強調像で低信号, T2 強調像では等信号を示した. 嚢胞性部分の内部に造影 T1 強調像でわずかに高信号となり, T2 強調像で実質性部分と同等の信号強度を示す壁在結節様の部分を認めた (Fig. 1).

超音波内視鏡 (EUS) 所見: 膵尾部に境界明瞭で比較的均一な内部エコーを有する低エコー腫瘍を認めた (Fig. 2a).

選択的背側膵動脈造影所見: 病変部に一致して均一な腫瘍濃染像を認めた (Fig. 2b). MRCP と ERCP では膵管の狭窄・途絶・拡張像はなく, 腫瘍は描出されなかった.

膵液の細胞診は classII で, K-ras の point mutation を認めなかった. 膵内分泌ホルモン検査とし

< 2002 年 11 月 27 日受理 > 別刷請求先: 阪本 研一
〒500 8705 岐阜市司町 40 岐阜大学医学部第 1 外科

Fig. 1 MRI of the cystic portion (black arrows) showed a low intensity on the dynamic T1-weighted image and a high intensity on the T2-weighted image. The solid portion (white arrows) showed a low intensity on the dynamic T1-weighted image and an intermediate intensity on the T2-weighted image. Inside of the cystic portion, there was a mural nodule-like area (white arrow heads) that appeared as a slightly high-intensity area on the dynamic T1-weighted image and revealed the same intensity as the solid portion on the T2-weighted image.



て、インスリン、グルカゴン、ソマトスタチンを測定したが、いずれも正常範囲内であった。

膵粘液性嚢胞腫瘍と診断し、悪性腫瘍を否定できないため手術を施行した。

手術所見：上腹部正中を8cm開腹しApplied GelPort(Applied Medical 社製)を装着し、ハンドアシスト法(hand-assisted laparoscopic surgery：以下、HALS)を用いた腹腔鏡下操作により、結腸脾彎曲部の授動、脾結腸間膜の切離、膵尾部脾の授動を行い、小切開創より膵尾部と脾臓を腹腔外に導出した。膵尾部に表面平滑で弾性軟な長径2.5cm大の腫瘤を触知した。近傍リンパ節の腫脹はなく、直視下に脾動静脈を確認温存し脾温存膵尾部部分切除を行った。手術時間は195分、出血量は190mlであった。

摘出標本肉眼所見：切除膵は4.0×3.5×1.5cm大で、剖面像で膵実質内に灰白色調の被膜と隔壁

を有する長径20mm大の充実性腫瘤を認めた。腫瘤内部に暗赤色部分と黄褐色部分の2つのモザイク状成分を認めた(Fig. 3)。

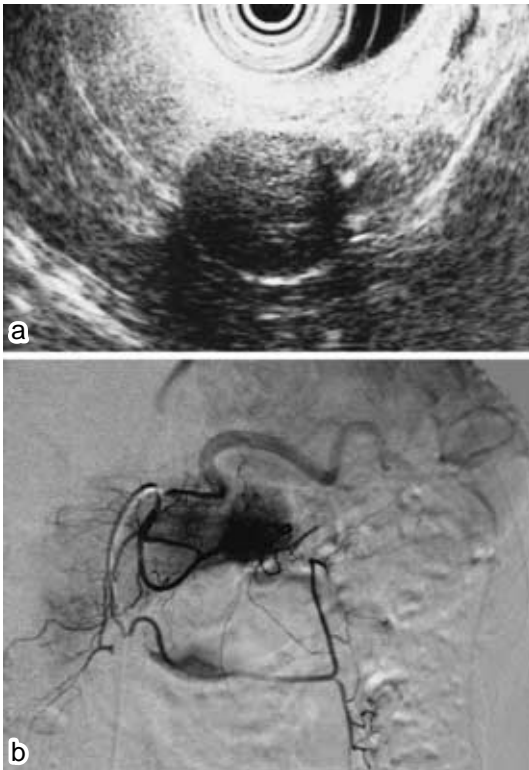
病理組織学的所見：腫瘤は全体が境界明瞭な被膜で包まれており、暗赤色部分は脾組織、黄褐色部分は明らかな角化像および皮膚附属器成分を有さない重層扁平上皮で被覆された嚢胞であった。両者の境界は明瞭で嚢胞内部はコレステリン結晶であった(Fig. 4)。epidermoid cystを伴った膵内副脾と診断した。CA19-9免疫染色で嚢胞壁の一部が濃染された。

術後経過は良好で術後21日目に退院した。なお、術後にCA19-9は正常値となった。

考 察

Halpertら¹⁾は剖検例2,700例中291例(10.8%)で346個の副脾を認め、うち78個(22.5%)が膵尾部にあったと報告している。膵内副脾は決して

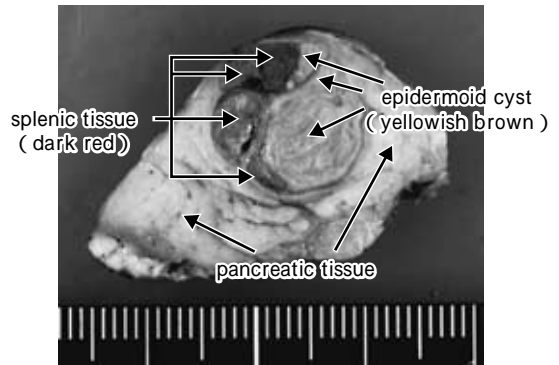
Fig. 2 a : On endoscopic ultrasonography, inside of the tumor appeared as a uniform low-echo area.
b : Selective dorsal pancreatic arteriography showed a uniform tumor stain.



まれではないが, epidermoid cyst を伴った脾内副脾 (以下, 本症) はきわめてまれで, 1980 年の Davidson ら²⁾の報告以来, 検索し得た範囲では本邦と欧米を併せて 20 例²⁾⁻¹⁴⁾が論文報告されているのみである. 以下, 自験例を含む報告例 21 例を集計検討した.

年齢は 17~67 歳 (平均 45 歳), 男性 8 例, 女性 13 例で, 中年女性に多かった. 半数以上の 11 例が無症状で偶然発見され, 無症状例の診断契機は健診時 7 例, 他疾患の治療経過中 4 例で, US での発見が 7 例と最も多かった. 有症状例の主訴は, 腹痛 7 例, 背部痛 1 例, 上腹部不快感 1 例であった. 全例が脾尾部で, 病変の最大径は 1.7~15.0cm (平均 4.2cm) で, 有症状例は無症状例より有意に大きかった. 嚢胞形態は単房性 9 例, 多房性 12 例で, 嚢胞内容物の性状は記載のある 18 例中 13 例が漿

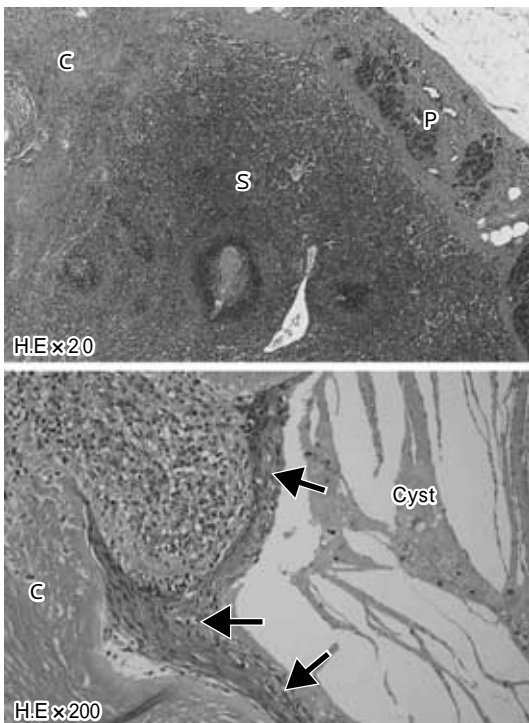
Fig. 3 Bisecting of the specimen contained a solid tumor of 20 mm in diameter in the pancreatic parenchyma, having grayish white capsule and septal wall. A mosaic consisting of a dark red area and a yellowish brown area was observed inside of the tumor.



液性であった. 血清腫瘍マーカーは記載のある 16 例のうち, CA19-9 6 例, CEA 2 例で高値で, 嚢胞内容物の腫瘍マーカーは 3 例で測定され, CA19-9 3 例, CEA 2 例で高値であった.

本症の診断には, epidermoid cyst の嚢胞性部分と脾内副脾の充実性部分の 2 つの成分の存在の確認と同時に, 充実性部分を脾内副脾と診断する必要がある. 脾内副脾は, 1) US, EUS では境界明瞭で均一な低エコー腫瘍, 2) CT では早期相で造影される高濃度腫瘍, 3) MRI では T1 強調像でやや低信号, T2 強調像でやや高信号の充実性腫瘍, 4) 血管造影検査では動脈相から毛細管相での濃染像が特徴的所見で, いずれも脾臓と同等レベルに認めることが重要とされている⁵⁾. 脾内副脾を画像診断するためには病変内にある程度の容量の脾組織が含まれている必要がある. われわれの集計では, 切除標本で脾内副脾部分を明らかな充実性部分として肉眼的に確認したのは 21 例中 16 例 (76%) で, このうち 10 例が術前に US, EUS, CT, MRI のいずれかで充実性部分が描出されていた. 充実性部分の検出感度は, US が 2 例/14 例 (14%), EUS が 5 例/6 例 (83%), CT が 8 例/15 例 (53%), MRI が 6 例/9 例 (67%) で, EUS, 次いで MRI が高かった. 血管造影検査は 14 例で施行され 9 例において異常所見を認めた.

Fig. 4 Histological findings. The tumor was covered with a capsule (C) with clear border. The dark red part represented spleen tissues (S) while the yellowish brown part was a cyst covered with the stratified squamous epithelium (black arrows) without obvious cornification and skin appendage components. The border between these areas was clear, and the inside of the cyst consisted of cholesterol crystal. (P: pancreatic tissue)



術前診断の記載のある17例24病名の内分けは、膵嚢胞性腫瘍6例、膵嚢胞6例、膵粘液性嚢胞腫瘍4例、solid cystic tumor 3例、膵嚢胞腺腫1例、膵粘液産生腫瘍1例で、10例で術前に充実性部分が指摘されていたにもかかわらず、本症を疑った報告例は3例(14%)のみで、術前正診断は1例もなかった。17例中8例は良性疾患、9例は自験例のごとく悪性疾患の可能性を考慮して手術が施行された。

記載のある20例の術式は、膵(体)尾部切除+脾摘術11例、膵尾部部分切除術7例、腫瘍核出術2例で、脾温存縮小手術は9例で施行されていたが、腹腔鏡下手術が施行されたのは自験例が初め

てであった。膵臓に対する腹腔鏡下手術は、1994年にGagnerら¹⁵⁾により慢性膵炎に対する施行例が初めて報告された。本邦では、内視鏡外科学会アンケート¹⁶⁾によれば、2000年までの腹腔鏡下膵切除術は97例で、うち45例(46.4%)が膵尾部切除術である。本邦欧米ともに、腹腔鏡下膵切除術は、慢性膵炎、内分泌腫瘍、嚢胞性疾患を対象とした報告が散見されるが、一般的には施行されていない¹⁷⁾。

今回われわれが用いたHALSによる腹腔鏡補助下膵切除術は、1998年にKlinglerら¹⁸⁾が嚢胞腺腫に対する施行例を初めて報告している。HALSでは、術者が手を用いることができ、小切開創を介した直視下操作が併用できることから、複雑な解剖と膵液を産生するという特殊性を有する膵臓において腹腔鏡手術を安全に施行するうえでの有用性は高いと考えられる。

膵嚢胞性疾患の鑑別診断として、きわめてまれではあるが本症を念頭に置く必要がある。嚢胞・充実両成分が混在し、充実成分が脾臓と類似する所見を呈することが本症の診断上重要と考えられた。自験例は女性の膵管と連続しない膵尾部腫瘍で、一部に壁在結節様の充実成分を伴い、内部構造がhoneycomb patternでないことから、粘液性嚢胞腺腫の嚢胞壁の一部に腺癌病変を合併する病変を疑った。術前画像を再検討してみると、病変はMRIのT2強調像で脾臓と同等の信号強度を呈する実質成分と、CTとMRIでは嚢胞様であるが、USとEUSでは粘液性嚢胞腫瘍に比べて強い内部エコーを呈する嚢胞成分から構成されていた。

文 献

- 1) Halpert B, Alden ZA: Accessory spleens. In or at the tail of the pancreas. Arch Pathol 77: 652-654, 1964
- 2) Davidson ED, Campbell WG, Hersh T: Epidermoid splenic cyst occurring in an intrapancreatic accessory spleen. Dig Dis Sci 25: 964-967, 1980
- 3) 山田研太郎, 村尾茂雄, 吉田秀雄ほか: 副脾から発生したepidermoid cystの1例. 日内会誌 70: 1007-1011, 1981
- 4) 印牧直人, 中澤三郎, 芳野純治ほか: Epidermoid cystを伴った膵内副脾の1例. 日消病会誌 92: 1212-1216, 1995

- 5) 古川 剛, 大橋計彦, 戸田信正ほか: 膵内副脾に見られた epidermoid cyst の 1 例. 膵臓 11 : 304 310, 1996
- 6) 藤竹信一, 野崎英樹, 小林裕幸ほか: 膵尾部副脾 epidermoid cyst の 2 例. 日臨外会誌 60 : 2442 2447, 1999
- 7) 園村哲郎, 片岡伸一, 筑後孝章ほか: 膵内副脾より発生した Epidermoid cyst の 1 例. 日獨医報 44 : 196 199, 1999
- 8) 稲葉圭介, 清水泰博, 安井健三ほか: 膵内副脾に発生した epidermoid cyst の 2 例. 手術 53 : 809 812, 1999
- 9) Sasou S, Nakamura S, Inomata M : Epithelial splenic cysts in an intrapancreatic accessory spleen and spleen. Pathol Int 49 : 1078 1083, 1999
- 10) 向井 敬, 藤江俊司, 橋村伸二ほか: 膵内副脾より発生した epidermoid cyst の 1 例. 臨放 45 : 787 790, 2000
- 11) 瀧沼朗生, 真口宏介, 小山内学ほか: 膵内副脾に発生した epidermoid cyst . 消化器画像 2 : 366 368, 2000
- 12) Choi SK, Ahn SI, Hong KC et al : A case of epidermoid cyst of the intrapancreatic accessory spleen. J Korean Med Sci 15 : 589 592, 2000
- 13) Tsutsumi S, Kojima T, Fukai Y et al : Epidermoid cyst of an intrapancreatic accessory spleen - a case report. Hepato-Gastroenterology 47 : 1462 1464, 2000
- 14) Horibe Y, Murakami M, Yamao K et al : Epithelial inclusion cyst (epidermoid cyst) formation with epithelioid cell granuloma in an intrapancreatic accessory spleen. Pathol Int 51 : 50 54, 2001
- 15) Gagner M, Pomp A : Laparoscopic pylorus-preserving pancreatoduodenectomy. Surg Endosc 8 : 408 410, 1994
- 16) 日本内視鏡外科学会学術委員会: 内視鏡外科手術に関するアンケート調査; 第 5 回集計結果報告. 日鏡外会誌 5 : 569 647, 2000
- 17) 山本光太郎, 岡 正朗: 胆道・膵疾患と腹腔鏡下手術; 最近の考え方と手技上のコツ. 膵疾患に対する腹腔鏡下手術の現状と展望. 消外 24 : 1133 1140, 2001
- 18) Klingler PJ, Hinder RA, Menke DM et al : Hand-assisted laparoscopic distal pancreatectomy for pancreatic cystadenoma. Surg Laparosc Endosc 8 : 180 184, 1998

A Case of Epidermoid Cyst in the Intrapancreatic Accessory Spleen Performed Hand-assisted Laparoscopic Partial Pancreatectomy

Kenichi Sakamoto, Hajime Hirose, Takuya Yamada, Mikio Yasumura, Hiroshi Matsuo, Tsuyoshi Shimamoto, Toyoo Nitta, Tomoo Mizutani, Naoki Futamura and Kuniyasu Shimokawa*
 First Department of Surgery, Gifu University School of Medicine
 Clinical Laboratory, Gifu University School of Medicine*

We report a case of epidermoid cyst in the intrapancreatic accessory spleen diagnosed during laparoscopic pancreatectomy under a diagnosis of pancreatic cystic tumor. An asymptomatic 40-year-old woman was found in hematology tests to have a high CA19-9 of 71.5 U/ml and abdominal computed tomography(CT) showed a tumor 20 mm in diameter with a clear border in the pancreatic tail. The lesion consisted of cystic and solid parts. A mural nodule was noted in part of the cystic wall. On endoscopic ultrasonography, the tumor appeared as a uniform low-echo area. Magnetic resonance cholangiopancreatography (MRCP) and endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP) showed no stenosis or dilation of the pancreatic duct. Arteriography showed a uniform tumor stain. Mucinous cystic tumor of the pancreas was suspected, necessitating manually assisted laparoscopic partial resection of the pancreatic tail preserving the spleen. The tumor consisted of 2 parts - 1 dark red, representing spleen tissue, and the other yellowish brown, indicating a cyst covered with stratified squamous epithelium without obvious cornification or skin appendage components. The final diagnosis was intrapancreatic accessory spleen accompanying an epidermoid cyst.

Key words : epidermoid cyst, intrapancreatic accessory spleen, laparoscopic surgery

[Jpn J Gastroenterol Surg 36 : 278 282, 2003]

Reprint requests : Kenichi Sakamoto Department of Surgery I, Gifu University School of Medicine
 40 Tsukasa-machi, Gifu, 500 8705 JAPAN