

閉塞性黄疸，門脈への強固癒着を認めた膵漿液性嚢胞腺腫の1例

兵庫県立尼崎病院外科

白潟 義晴 吉富 摩美 池袋 浩二
 澤田 尚 糸井 和美 福山 学
 西川 秀文 水野 恵文 牧野 尚彦

症例は68歳の女性。腹痛と褐色尿出現し近医を受診した。膵腫瘍と閉塞性黄疸を指摘され当院へ紹介された。腹部造影CT検査にて膵頭部に内部が不均一に造影される最大径4cmの腫瘍とこれに連続して門脈に接する嚢胞様病変，胆道造影にて総胆管末端での完全閉塞，を認めた。血管造影にて膵頭部における著明な腫瘍濃染と4cm長に及ぶ門脈の狭窄像を認めたため，悪性腫瘍を否定できず手術を施行した。膵頭部に4cmの弾性硬の腫瘍とこれに連続して膵外に突出し門脈に強固に癒着する3cmの腫瘍を認め門脈とは剥離不可能で膵頭十二指腸切除とともに4cmの門脈を合併切除し門脈再建を施行した。病理組織診断は膵漿液性嚢胞腺腫で悪性像を認めなかった。術後経過は良好であった。膵漿液性嚢胞腺腫は従来良性疾患とされ切除に門脈合併切除を要したのは極めてまれであり，また本症例は肉眼形態も極めてまれと考えられた。文献的考察を加え報告した。

はじめに

膵漿液性嚢胞腺腫は膵の腺房中心細胞を起源とする比較的まれな良性腫瘍で，膵粘液性嚢胞腺腫と異なり悪性化の可能性はないとされてきた。しかし近年，転移や浸潤を認めた症例が報告され，その生物学的悪性度の差に関心が集まりつつある。今回われわれは閉塞性黄疸，門脈への強固癒着を認めた膵漿液性嚢胞腺腫を経験したので，若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：68歳，女性

主訴：腹痛，褐色尿

既往歴：糖尿病にて内服治療中

現病歴：糖尿病にて近医通院中，平成12年6月腹痛出現し，腹部エコーにて膵腫瘍と主膵管の拡張を指摘されたため当院へ紹介され，膵癌の疑いにて入院を勧められるもその後来院しなかった。平成13年10月腹痛と褐色尿出現し近医を受診

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	6,500 / μ l	T-Bil	10.1 mg/dl
RBC	398×10^4 / μ l	D-Bil	7.4 mg/dl
Hb	12.0 g/dl	GOT	207 IU/l
Ht	36.6 %	GPT	379 IU/l
PLT	28.5×10^4 / μ l	ALP	1,894 IU/l
Na	138 mEq/l	ALB	3.5 g/dl
K	3.4 mEq/l	LDH	235 IU/l
Cl	97 mEq/l	γ -GTP	1,719 IU/l
Amy	105 IU/l	CEA	2.5 ng/ml
BS	138 mg/dl	CA19-9	83 U/ml
CRP	2.5 mg/dl	elastase 1	837 ng/dl

し，膵腫瘍と黄疸を指摘され，再度当院へ紹介され入院となった。

入院時現症：身長146cm，体重47kg，血圧132/72mmHg，体温36.5℃，脈拍82/min，眼球結膜，皮膚に黄染を認めた。腹部は平坦，軟で腫瘤を触知しなかった。

入院時検査所見：肝胆道系酵素の上昇とともに総ビリルビン10.1mg/dlと著明な上昇を認めた。腫瘍マーカーではCA19-9値が83U/ml，elastase 1値が837 ng/dlと上昇していた (Table 1)。

<2003年7月23日受理> 別刷請求先：白潟 義晴
 〒660 0828 尼崎市東大物町1-1-1 兵庫県立尼崎
 病院外科

Fig. 1 Abdominal enhanced CT at the first consultation to our hospital showed a heterogeneous tumor measuring 3.0 cm in its maximum diameter at the head of the pancreas(arrow)and a neighboring cystic tumor adjacent to the portal vein (arrowhead)

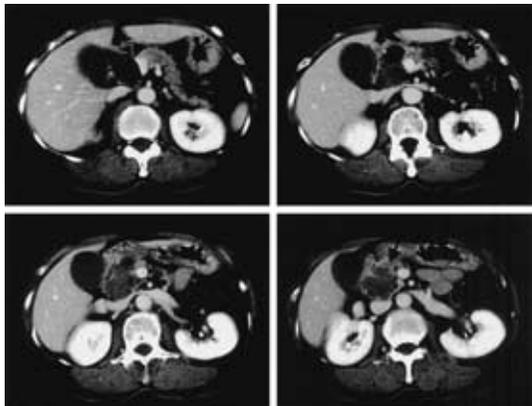


Fig. 2 Abdominal enhanced CT on admission showed the tumor at the head of the pancreas grown to 4.0 cm in diameter(arrow). It also showed the marked swelling of the gallbladder and the dilatation of the intrahepatic bile duct.

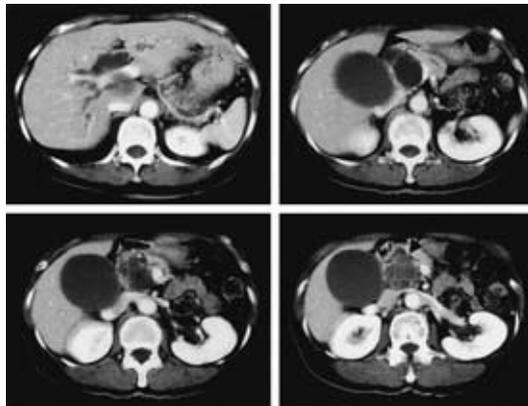
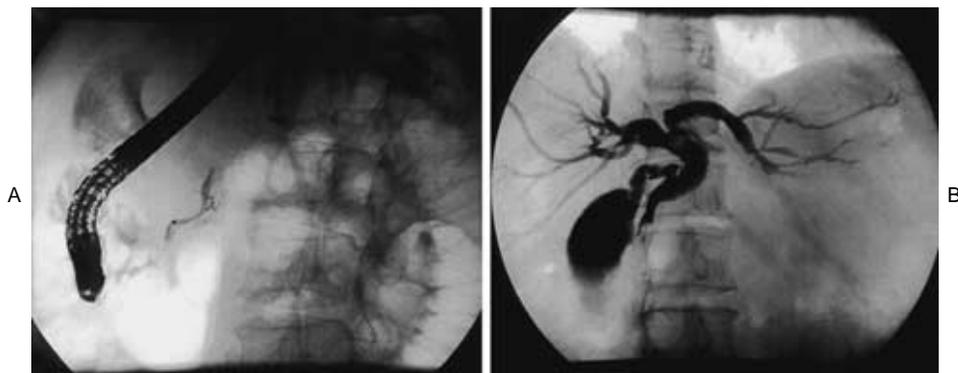


Fig. 3 ERP showed the cessation of the main pancreatic duct at the head of the pancreas (A) PTC showed the complete obstruction of the common bile duct at the end (B)



入院時腹部超音波検査所見：膵頭部から肝側に径3cmの嚢胞性病変を認めた。

初診時腹部造影CT：膵頭部に内部が不均一に造影される隔壁構造を有する最大径3cmの腫瘍とこれに連続して門脈に接する嚢胞様病変を認めた (Fig. 1) .

入院時腹部造影CT：膵頭部の腫瘍は最大径4cmと増大し，胆嚢の著明な腫大と肝内胆管の拡張を認めた (Fig. 2) .

ERCP所見：膵頭部にて主膵管の途絶を認め

た．胆管の造影は不成功に終わった (Fig. 3A) .

経皮経肝胆道造影：経皮経肝胆道ドレナージを施行した際の胆道造影では，総胆管末端での完全閉塞を認めた (Fig. 3B) .

腹部血管造影検査：腫瘍は主に後上膵十二指腸動脈，前上膵十二指腸動脈より栄養され，著明な腫瘍濃染を認めた (Fig. 4A) . 門脈相では門脈に4cmに及ぶ狭窄像を認めた (Fig. 4B) . 以上の所見より病変は緩徐ながら進行性であり，門脈浸潤も疑われることから悪性を否定できないため平成

Fig. 4 Angiography showed (A) the marked tumor stain (arrowhead) and (B) the stenosis of the portal vein measuring 4.0 cm in the length (arrows)

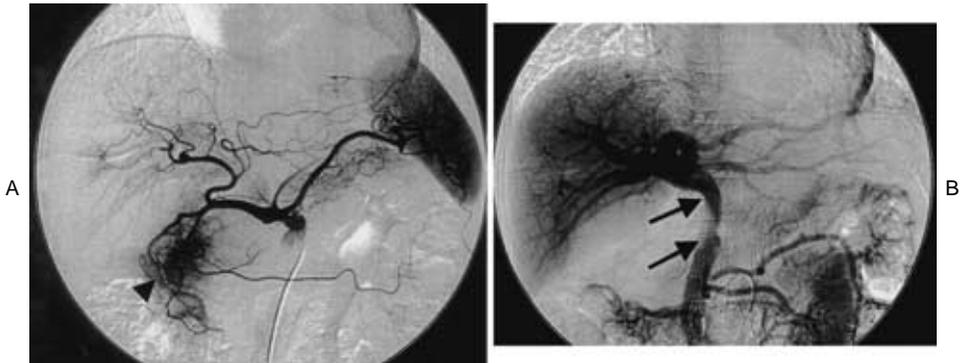
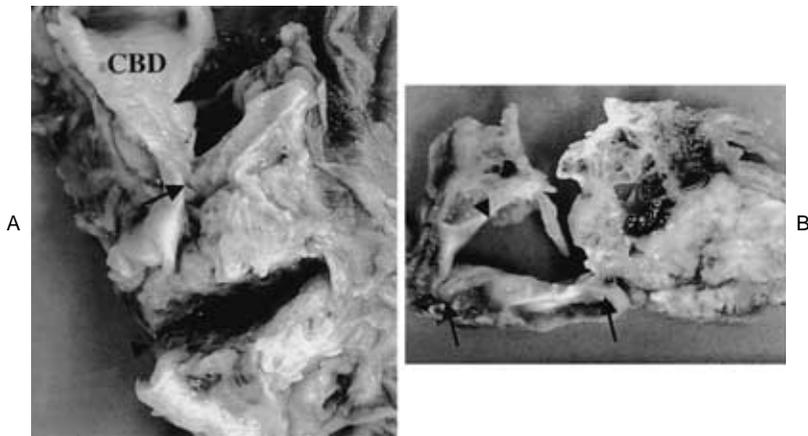


Fig. 5 The resected specimen(A): The microcystic tumor measuring 4.1 × 3.8 × 3.7 cm at the head of the pancreas (arrowhead) Common bile duct (CBD) was obstructed by the progression of this microcystic tumor(arrow)(B): The macrocystic tumor 3.0 cm in diameter (arrowhead) with severe adhesion to the portal vein (arrows)



13年11月2日手術を施行した。

手術所見：腹腔内に腹水を認めず，リンパ節の腫脹も認めなかった。膵頭部に4cmの弾性硬の腫瘍とこれに連続して膵外に肝側に向かって突出し，門脈に強固に癒着する3cmの腫瘍を認めた。門脈と腫瘍の癒着は浸潤と考えられるほど強固で，剥離不可能のため膵頭十二指腸切除，D2リンパ節郭清とともに4cmの門脈を合併切除し，門脈再建を施行した。

病理所見：膵頭部の腫瘍は4.1×3.8×3.7cmで

断面がスポンジ様外観を示す数mm大の多数の小嚢胞よりなり，総胆管末端はこの小嚢胞の進展により閉塞していたが胆管内腔面には病変を認めなかった(Fig. 5A)。門脈に強固な癒着を認めた部位は3.0cmの単房性漿液性嚢胞であった(Fig. 5B)。膵頭部の腫瘍は病理組織学的には大小さまざまな嚢胞より成り，単層の扁平から立方上皮で覆われ，部分的に内腔に乳頭状に増殖していたが細胞の異型を認めなかった(Fig. 6A, B)。腫瘍細胞の胆管壁への浸潤や腫瘍と接する膵組織に随伴性膵

Fig. 6 Microscopic finding showing (A): many small cysts lined with a layer of flat or cuboidal cells(H. E. stain $\times 4$)and (B): papillary growth in the cysts(H. E. stain $\times 40$)No cellular atypia is noted.

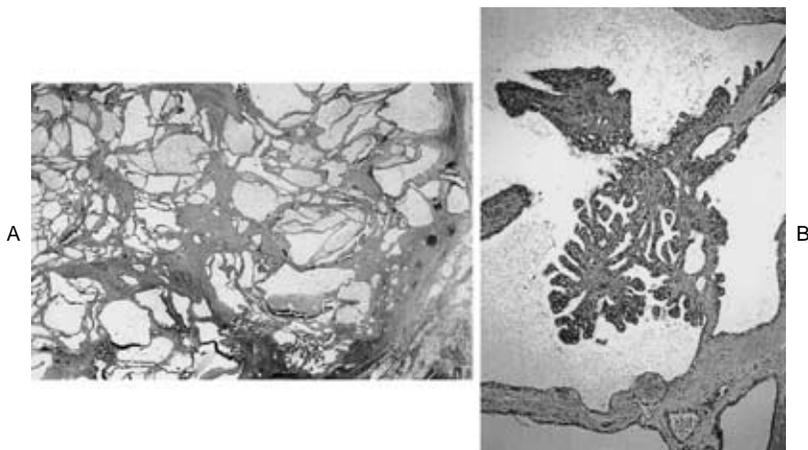


Fig. 7 Microscopic finding of the macrocystic tumor (T) with severe adhesion to the portal vein (PV)(Elastica-van Gieson stain A : $\times 4$, B : $\times 8$). The atrophy of the smooth muscle in the adventitia (arrow)and the intimal fibrous hypertrophy (arrowhead)of the portal vein were seen. The papillary growth of the tumor cells was markedly observed but their infiltration to the portal vein was not seen.



炎の所見を認めなかった．門脈と癒着していた大きな嚢胞もこれらの嚢胞と同様のもので，腫瘍と高度に癒着していた門脈壁では外膜の平滑筋層の萎縮が高度で内膜の線維性肥厚を認め，腫瘍細胞は乳頭状に増殖していたが，門脈壁への浸潤を認めなかった(Fig. 7A, B)．切除したリンパ節には転移を認めなかった．以上の所見より膵漿液性嚢胞腺腫と診断した．

術後経過：術後7日目より経口摂取を開始し経過は極めて良好で糖尿病のコントロールにやや日数を要したが，術後38日目に軽快退院し，術後1年以上を経過した現在再発の徴候なく元気に社会生活を送っている．

考 察

膵の嚢胞性腫瘍は比較的まれな疾患であるが，Compagnoら¹⁾²⁾，Hodgkinsonら³⁾の詳細な臨床

病理学的研究によって、完全に良性である漿液性嚢胞腺腫と悪性もしくは悪性化しうる粘液性嚢胞腺腫とに分類された。前者は microcystic で細胞質内にグリコーゲンを、後者は macrocystic で粘液を有する点で明瞭に異なるとされる。この漿液性嚢胞腺腫は膵外分泌腫瘍の1%を、膵嚢胞性腫瘍の4~10%を占める比較的にまれな腫瘍である^{4)~6)}が近年、各種画像診断法の発達により発見される機会も増加し、本邦報告例140例の集計⁷⁾では、発症年齢は50~69歳に58.9%(平均年齢59.2歳)、男女比は1:2.4で、発生部位は頭部32%、体部68%で中年女性の膵体尾部に好発していた。症状としては腹痛(23%)、腹部腫瘤(23%)、黄疸(8%)、無症状(26%)で、良性腫瘍のため本症例のように閉塞性黄疸を認めるものはまれであった。膵漿液性嚢胞腺腫の画像所見の特徴は、超音波検査で境界明瞭な充実性腫瘤として描出されるが、単純CT検査で低吸収を呈する腫瘤や多房性嚢胞として描出され、造影CT検査では隔壁様構造がより明瞭化して蜂巢状、網目状構造を呈するとされ、血管造影では血管増生、腫瘍濃染像、支配動脈の拡張を認め、ERCPでは主膵管の圧排、偏位、狭窄を認めることが多いとされている⁸⁾。本症例では、膵頭部の microcystic な部分においては造影CTにおける蜂巢状、網目状構造や血管造影検査における腫瘍濃染像など膵漿液性嚢胞腺腫に特徴的な所見を認めたが、膵外に肝側に突出する macrocystic な部分においてはこれらの特徴的な所見を認めなかった。門脈の狭窄像も認めたため他の嚢胞性疾患や悪性疾患も考えられ、術前の確定診断は困難であった。膵漿液性嚢胞腺腫は microcystic adenoma とも呼ばれるようにその肉眼形態は基本的には径数mm単位の小嚢胞からなる多房性嚢胞であるが、最近径2cmを越える嚢胞を含む macrocystic な亜型も報告されつつある。一二三⁹⁾は膵漿液性嚢胞腺腫の肉眼的形態の多様性に関する検討を行い macrocystic type を macrocystic dominant type と pure macrocystic type とに分類している。本症例は膵頭部の microcystic な部分と膵外に突出する3cmの単一の macrocyst から成り、このどちらの分類にも当てはまら

ず肉眼形態からも極めてまれな症例と考えられる。膵漿液性嚢胞腺腫の組織所見は本症例のように嚢胞壁は一様な立方状あるいは扁平な被覆細胞から成り、腫瘍細胞の核分裂像はほとんど認めないとされている⁸⁾。以前は、悪性例はないとされていたが、1989年にGeorgeら¹⁰⁾が胃脾浸潤、脾静脈内腫瘍栓、肝転移を認めた症例を報告して以来、外国例を含めこれまで9例の悪性と考えざるをえない症例が報告されている⁸⁾。しかし、通常の膵癌に高頻度に認められるリンパ節転移や腹腔内播種の報告例はない。悪性例においても原発巣、転移巣とも一部に軽度の核異型を認めるのみで、現時点では良性の膵漿液性嚢胞腺腫とは細胞レベルでの鑑別は不可能であるとする意見が多い^{10) 11)}。したがって、すべての膵漿液性嚢胞腺腫は浸潤能を持つ低悪性腫瘍で、その増殖過程で偶然に腫瘍細胞が脾静脈や門脈系に入り、増殖しえた症例が遠隔転移をきたすと考えられる¹¹⁾。治療として、本疾患は基本的には良性疾患と考えられるため、確定診断がつけば切除の必要はないとの意見もあるが、実際には確定診断がつかず悪性の可能性も否定できないことから切除される場合が多い。切除術式としては全切除が可能なら核出術などの安全性と残膵機能温存を考慮した術式が望まれるが、膵頭十二指腸切除のような系統的切除を要する場合も多い⁸⁾。本症例のように門脈に強固に癒着し門脈切除再建まで要したという報告は、本邦において自験例を含めわずかに3例のみ^{12) 13)}で、極めてまれと考えられる。山崎ら¹²⁾は膵頭部の6cmの腫瘍が門脈を強く圧排し癌浸潤を疑わせるほどの強固な門脈との癒着を認め、右肝動脈も腫瘍に巻き込まれていたため膵頭十二指腸切除、門脈・右肝動脈合併切除を施行し術後一過性の肝不全徴候を認めたが回復し術後3年の時点で健在であると報告、阿部ら¹³⁾は8cmの腫瘍に対し膵頭十二指腸切除施行時、強固な癒着により門脈合併切除が必要であり術後5年の時点で生存と報告している。本症例では術中所見において十分な腫瘍との Surgical Margin の確保のため門脈合併切除が必要と判断した。腫瘍と門脈の高度癒着の原因として、門脈壁外膜の平滑筋層の高度の萎縮と内膜の線維

性肥厚という組織所見からは腫瘍の増大による圧迫が考えられるが，門脈壁外膜に接した腫瘍細胞に著明な乳頭状増殖の所見を認め，腫瘍の全切除のためには門脈合併切除が不可避であったと考えられ，症例によってはこのような拡大手術もやむをえないと思われた。

稿を終えるにあたり，病理学的診断に関してご指導頂いた当院病理部の三村六郎先生に深謝いたします。

文 献

- 1) Compagno J, Oertel JE : Microcystic adenomas of the pancreas (glycogen-rich cystadenomas) A clinicopathologic study of 34cases. Am J Clin Pathol 69 : 289 298, 1978
- 2) Compagno J, Oertel JE : Mucinous cystic neoplasms of the pancreas with overt and latent malignancy (cystadenocarcinoma and cystadenoma) A clinicopathologic study of 41 cases. Am J Clin Pathol 69 : 573 580, 1978
- 3) Hodgkinson DJ, ReMine WH, Weiland LH : Pancreatic cystadenoma. A clinicopathologic study of 45 cases. Arch Surg 113 : 512 519, 1978
- 4) Warshaw AL, Compton CC, Lewandrowski K et al : Tumors of the pancreas : New clinical, pathologic, and pathologic observations in 67 patients. Ann Surg 212 : 432 445, 1990
- 5) Yamaguchi K, Enjoji M : Cystic neoplasms of the pancreas. Gastroenterology 92 : 1934 1943, 1987
- 6) Yamaguchi K, Hirata R, Kitamura K : Serous cystadenoma of the pancreas : Radiologic and clinicopathologic features in seven cases. Gastroenterol Jpn 25 : 607 612, 1990
- 7) 長沼達史 : Serous cystadenoma . 水本龍二監，川原田嘉文編 . 肝・胆・膵の外科 疾患編 . 医学図書出版，東京，1994 p194 195
- 8) 山口幸二，岸仲正則，中野賢二ほか : 膵漿液性嚢胞腫瘍 (腺腫) . 胆と膵 22 : 11 17, 2001
- 9) 一二三倫朗，山根隆明，川口 哲ほか : 膵漿液性嚢胞腺腫の肉眼形態の多様性に関する検討 . 胆と膵 22 : 91 98, 2001
- 10) George DH, Murphy F, Michalski R et al : Serous cystadenocarcinoma of the pancreas : a new entity? Am J Surg Pathol 13 : 61 66, 1989
- 11) 松能久雄，小西二三男，佐々木恵子ほか : 浸潤性増殖を示した膵漿液性嚢胞腺腫 . 癌の臨 40 : 99 103, 1994
- 12) 山崎信保，尾池文隆，真部一彦ほか : 門脈・右肝動脈合併切除を必要とした膵漿液性嚢胞腺腫の1例 . 日消外会誌 25 : 2843 2847, 1992
- 13) 阿部秀樹，木村 理，幕内雅敏ほか : 膵漿液性嚢胞腺腫ならびに癌 . 臨消内科 13 : 1635 1640, 1998

A Case of Serous Cystadenoma of the Pancreas with Obstructive Jaundice and Severe Adhesion to the Portal Vein

Yoshiharu Shirakata, Mami Yoshitomi, Koji Ikebukuro, Hisashi Sawada,
Kazumi Itoi, Manabu Fukuyama, Hidefumi Nishikawa,
Yoshifumi Mizuno and Yoshihiko Makino

Department of Surgery, Hyogo Prefectural Amagasaki Hospital

A 68-year-old woman with abdominal pain and dark urine consulted a local practitioner. She was referred to our hospital for further examination with the possible diagnosis of pancreatic tumor and obstructive jaundice. Abdominal enhanced computed tomography (CT) showed a heterogeneous tumor measuring 4.0 cm in its maximum diameter at the head of the pancreas and a neighboring cystic tumor adjacent to the portal vein. Cholangiography showed the complete obstruction of the common bile duct at the end. Angiography showed a marked tumor stain and a 4.0 cm-long stenosis of the portal vein. An operation was performed because malignancy could not be ruled out. We noticed an elastic hard tumor measuring 4.0 cm in diameter at the head of the pancreas and a neighboring tumor measuring 3.0 cm in diameter protruding from the pancreas toward the liver with severe adhesion to the portal vein. We could not detach the tumor from the portal vein and performed pancreatoduodenectomy with a concomitant segmental excision of 4.0 cm of the portal vein, followed by reconstruction. The histological diagnosis was serous cystadenoma of the pancreas and there was no evidence of malignancy. The postoperative course was excellent. Previously, serous cystadenoma of the pancreas was considered to be a benign tumor and this is an extremely rare case because concomitant excision of the portal vein was necessary for the resection of this tumor, in addition to its morphological specificity.

Key words : obstructive jaundice, severe adhesion to the portal vein, serous cystadenoma of the pancreas

[Jpn J Gastroenterol Surg 37 : 57 62, 2004]

Reprint requests : Yoshiharu Shirakata Department of Surgery, Hyogo Prefectural Amagasaki Hospital
1 1 1 Higashidaimotsu-cho, Amagasaki, 660 0828 JAPAN