

症例報告

膵リンパ上皮嚢胞切除後の残存膵に膵癌を発症した1例

社会保険徳山中央病院外科

重田 匡利 岡村 啓二 藤田 雄司
河内 康博 宮下 洋

患者は58歳の男性で、腹痛を主訴に受診、精査にて膵尾部の嚢胞性病変が認められた。血中CA19-9が高値であり、またCT・血管造影より嚢胞腺癌などの膵臓の腫瘍性嚢胞が疑われた。膵体尾部切除が施行され、その結果リンパ上皮腫と判明した。それから1年後にCA19-9の再上昇および残存膵の充実性腫瘤、および嚢胞性病変を認め内視鏡下針生検が施行された。その結果、膵癌と診断され残存膵全摘が施行された。膵臓のリンパ上皮嚢胞は扁平上皮に覆われる嚢胞で、膵嚢胞としての発生はまれである。そのため、発生機序および病的意義はまだまだはっきりしていない。リンパ上皮嚢胞と膵臓の悪性腫瘍が合併した報告は著者らが調べた範囲では本症例以外に認めない。膵癌を併発した貴重な症例を経験したので報告する。

はじめに

まれな膵嚢胞性病変として扁平上皮で被覆される嚢胞がある。それにはリンパ上皮嚢胞・類表皮嚢胞・類皮嚢胞の報告があるが、いずれも良性である。しかし、良性であるにもかかわらず、血中の腫瘍マーカーの上昇を伴うものがある。本症例では初回手術では嚢胞腺癌を疑い膵体尾部切除を施行し、病理診断で良性のリンパ上皮嚢胞であると判明した。ところが、その1年経過後に残存膵の大部分を占める膵癌が発見され残存膵全摘術を施行した。まれな膵臓のリンパ上皮嚢胞を発症し、そして異時性ではあるが膵癌を合併した症例を経験した。本症例でもCA19-9の著明な上昇があったが、リンパ上皮嚢胞と膵臓の悪性腫瘍とは鑑別困難であることが多く、さらに両者が近い時期に合併したことで診断・治療に苦慮した。貴重な症例であり報告する。

症 例

患者：58歳、男性

主訴：腹痛

既往歴：糖尿病（境界型）

現病歴：平成14年5月より左側腹部痛あり近医受診。精査目的に当院紹介となった。

血液検査所見：CRP 1.14mg/dlと軽度高値。血中アミラーゼは正常。腫瘍マーカーはCA19-9 841.9U/ml, CEA 2.6ng/mlとCA19-9の著明な上昇を認めた。

上部消化管内視鏡検査：胃体上部後壁に圧排所見を認めた。

腹部超音波検査：膵尾部に径58×56mmの境界明瞭な低エコー域を認めた (Fig. 1A)。

内視鏡下逆行性膵管造影：膵頭部も含め膵管は全長にわたって平滑であり拡張・狭窄は認めなかった。また、膵管と嚢胞内との交通は認めなかった (Fig. 1B)。

腹部CT：径60mm大の嚢胞性病変を認め、一部で壁の不整を認めた。また、膵頭部に病変は認めなかった (Fig. 2A)。

腹部血管造影：腹腔動脈よりの造影で、膵体尾部に嚢胞壁が淡く造影され脾動脈は圧排されていた。また、壁の一部からその周囲に腫瘍濃染像を思わせる辺縁不整な造影効果のある部位を認めた (Fig. 2B)。

CT・血管造影の画像所見、および血中CA19-9が高値であることより膵嚢胞腺癌の診断で、平成

Fig. 1 A : Ultrasonography view showed the cystic lesion of the pancreas.
B : Endoscopic retrograde pancreatography showed no communication between the pancreatic ducts and the cyst.

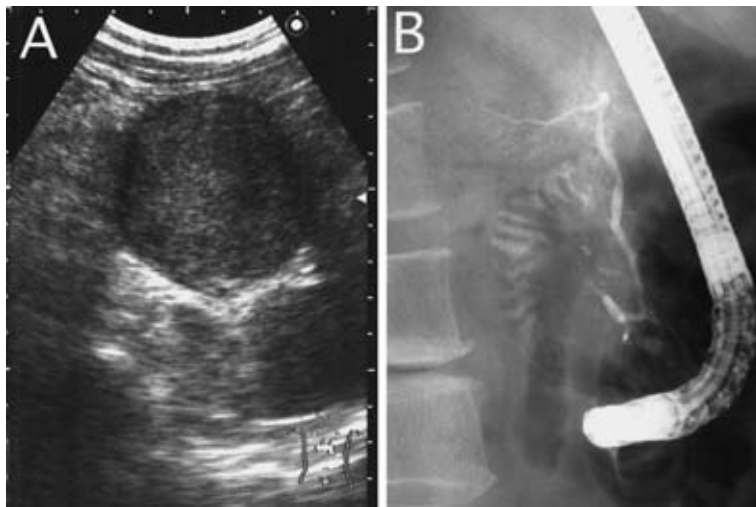
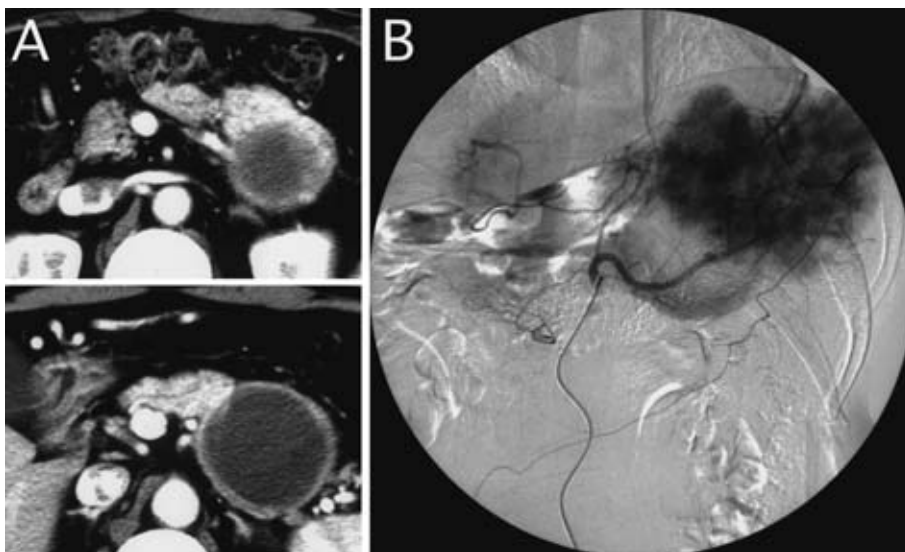


Fig. 2 A : CT scan revealed the cystic lesion in the tail of the pancreas with irregular wall thicknesses at the some areas. And no lesion in the head of the pancreas. B : Angiography revealed tumor stain and cyst wall stain in the tail of the pancreas.



14年6月24日、手術を施行した。

初回手術所見：膵頭部から膵体部の膵実質は軟らかく正常であった。膵尾部に手拳大の腫瘤を認め周囲は強く癒着していた。膵臓をPV左縁で腫瘍より2cmのマーシをとって切離し、腫瘍と癒着した大網の一部、および脾臓を en bloc に合併

切除し膵体尾部脾臓切除施行した。

摘出標本で膵尾部に連続し径7×6cmの厚い被膜をもつ嚢胞があり、内部には顆粒物を含んだクリーム色の液体と粥状物が貯留していた。嚢胞壁は最も厚い部位では1cmの線維性壁肥厚を認め、周囲組織へ強固に癒着していた。CTでの不整な

Fig. 3 Macroscopic findings of the resected specimen. The cyst had smooth thick wall with hard adhesion including greater omentum and spleen.

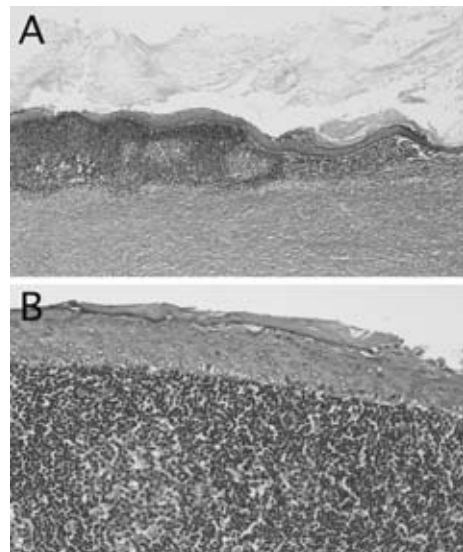


壁肥厚，血管造影での濃染部は炎症性に癒着した大網であった (Fig. 3)。

病理所見：腔内に角化物質を伴う異型性に乏しい重層扁平上皮で覆われた嚢胞性病変であり，周囲にはリンパ球を主体とする炎症細胞浸潤を認め，線維芽細胞および膠原線維が増殖し，扁平上皮とリンパ組織の2重構造となっていた。炎症により線維化した膵組織を認め，一部で膵臓の正常構造は破壊されていた。良性のリンパ上皮嚢胞の診断であった (Fig. 4)。腫大したリンパ節を認めたがそれらにも特異的な異常を認めず。内溶液は細胞診で Class II であった。

術後経過：良好に経過し，術後21日目に退院となった。CA19-9は術後1か月で116.5U/mlと低下したが2か月後も正常値には戻らなかった。しかし，良性病変であり腫瘍マーカーによる経過観察は適応がないと考え測定は打ち切った。しばらくは，順調に経過していた。しかし，術後1年目

Fig. 4 Microscopic findings of the cyst wall. The cyst is lined by stratified squamous epithelium that have keratinization surrounded by the mature lymphoid tissue (A:HE stain $\times 40$, B:HE stain $\times 400$).



ころより，次第に強い腹痛を訴えるようになった。そのためCA19-9を測定したところ2,300U/mlにまで上昇していた。精査目的に腹部CT，MRI施行したところ膵鉤部を中心に残存した残存膵のほぼ全体を占める腫瘍を認め，また，近傍に径2cm大の嚢胞を認めた (Fig. 5)。術後性の変化，嚢胞の再発，あるいは膵癌かの鑑別を目的に内視鏡下穿刺吸引細胞診を施行した。その病理診断の結果，腺癌と診断し平成15年8月4日，手術となった。

第2回手術所見：残存膵頭部全体を硬い腫瘍として触知した。前回の膵切除断端近傍に嚢胞を認めたが，それは術後変化によると思われる仮性嚢胞であった。残存膵全摘術を施行した。残存膵は5×4cm大でほぼ全体が白色硬髄様の組織となっていた (Fig. 6A)。また，肝表面に粟粒大の転移巣を2個認め切除し病期は Stage IV b と診断した。

病理所見：中分化型管状腺癌で前回の膵断端近傍までの残存膵全体に腫瘍細胞は進展していた (Fig. 6B)。

術後経過：術後腸閉塞を起こしたが保存的に軽快し術後61日退院となった。以後，化学療法施行

Fig. 5 CT scan revealed the cystic lesion and solid mass of the residual pancreas.

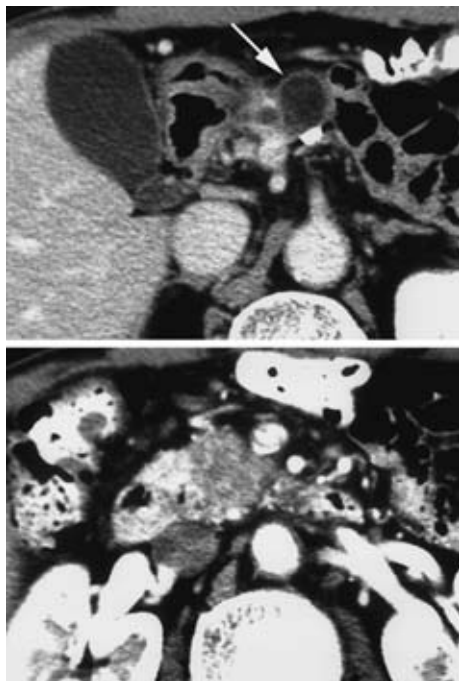
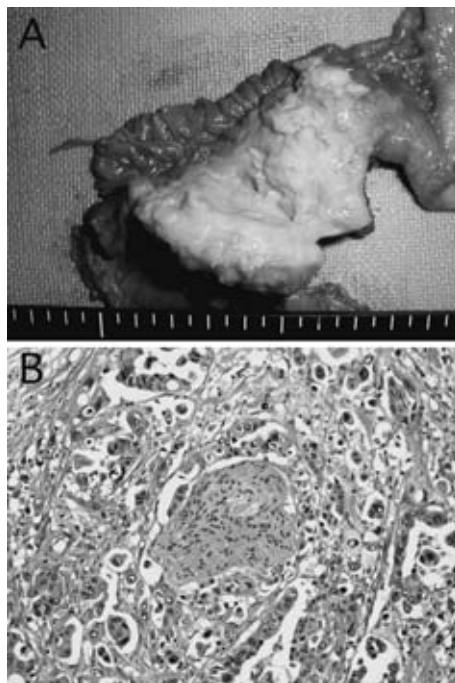


Fig. 6 A: Macroscopic view of the resected residual pancreas incised along the main pancreatic duct. B: Microscopic view of the cancer cell of the pancreas.



したが術後4か月に多発性肝転移を認め、第2回目手術より8か月後に癌死した。

考 察

リンパ上皮嚢胞は扁平上皮で被覆される嚢胞 (Squamous-lined Cyst of the Pancreas) に分類され、他に類表皮嚢胞、類皮嚢胞が報告されているが、いずれも膵嚢胞として見つかるものはまれである¹⁾²⁾。調べた範囲ではリンパ上皮嚢胞は本症例を含め国内外で82例の報告がある程度である。疫学的な特徴があり中高齢男性に好発すると報告されている³⁾。病理では扁平上皮とリンパ組織の2重構造、内部にケラチン様物質を認める。診断において各種画像診断での鑑別は困難であるが超音波内視鏡下あるいはCTガイド下の穿刺吸引細胞診が診断に有用であると報告されている⁴⁾。扁平上皮で被覆されるこれらの嚢胞は基本的に良性であるが、症状のある場合、あるいは鑑別困難であることで治療として外科的切除が選択される。今回の症例でもそうであったが、本疾患には高頻度に腫瘍マーカー高値を呈する症例が報告されてお

り、その病的意味は明らかではないものの膵癌との鑑別をさらに困難にしている。しかし、術前CA19-9が高値であった症例のすべてにおいて手術後CA19-9は正常化している⁵⁾。本疾患の発生機序としては胎生期の鰓溝由来⁶⁾、膵周囲リンパ節に迷入した膵管上皮由来⁷⁾、膵管上皮の扁平上皮化性⁸⁾などが示唆されており、その発生に興味もたれる。そして、嚢胞上皮がしばしば腫瘍マーカーを産生することより膵管上皮化生説を支持する報告が多い。ところで、その潜在的な悪性疾患との関連はないだろうか。本症例は、個々の病変は偶発したものであろうが、膵全体が膵管上皮の化生を誘発させるような母地であって一部が癌化したと両病変を関連づけられる。しかし、膵癌との合併例は調べた範囲では本症例のみであった。今後の報告例を待つことで、その合併頻度を含めた関係が明らかになると思われる。一方で他の腫瘍性病変との合併では、結腸癌⁹⁾、胃癌¹⁰⁾、十二指腸乳頭部癌¹¹⁾、そして膵臓では漿液性嚢胞腺腫¹²⁾との合

併例が報告されている。ところで反省すべき点でもあるが、本症例では再手術時すでに進行した膵癌であった。その原因に、術後性変化を伴い画像診断での評価が困難であったこと、腹痛も術後の不定愁訴と考えられたこと、良性腫瘍であるという観点から診療にあたったことが原因に挙げられる。本症例では異時性発生であるが初回手術時、すでに微小膵癌が存在していた可能性も疑われる。基本的には良性であっても病態不詳の希少病変であり本症例のように術後の腫瘍マーカーが正常化しない例では悪性腫瘍の合併を考慮し、より注意深い経過観察が必要であると思われた。

文 献

- 1) Adsay N, Hasteh F, Jeanette D et al : Squamous-lined Cysts (Teratomas), and Accessory-Splenic Epidermoid Cysts. *Semin Diagn Pathol* 17 : 56—65, 2000
- 2) 中山吉福, 岩崎 宏, 村山 寛ほか : まれな膵嚢胞性疾患の病理. *消画像* 2 : 357—360, 2000
- 3) 宮崎純一, 中澤三郎, 芳野純治ほか : 膵リンパ上皮嚢胞の1例. *日消病会誌* 96 : 550—557, 1999
- 4) Liu J, Shin HJ, Rubenchik I et al : Cytologic features of lymphoepithelial cyst of the pancreas : two preoperatively diagnosed cases based on fine-needle aspiration. *Diagn Cytopathol* 21 : 346—350, 1999
- 5) 二村直樹, 松友将純, 立山健一郎ほか : 膵リンパ上皮嚢胞の1例. *日臨外会誌* 64 : 1745—1748, 2003
- 6) Luchtrath H, Schriefers KH : Pankreaszyste unter dem Bild einer sogenannten branchiogenen Zyste. *Pathologie* 6 : 6217—6219, 1985
- 7) Hisaoka M, Haratake J, Horie A et al : Lymphoepithelial cyst of the pancreas in a 65-year-old man. *Hum Pathol* 22 : 924—926, 1991
- 8) Truong LD, Rangdaeng S, Jordan PH : Lymphoepithelial cyst of the pancreas. *Am J Surg Pathol* 11 : 899—903, 1987
- 9) 毛利靖彦, 廣純一郎, 松本好一ほか : 下行結腸癌に合併した膵リンパ上皮嚢胞の1例. *三重医* 46 : 69—73, 2003
- 10) 松井克明, 雪 正昭, 村上雅一ほか : 腹部超音波検査で偶然発見された膵頭部リンパ節のリンパ上皮嚢胞 (lymphoepithelial cyst) の1例. *鳥取医誌* 30 : 16—20, 2002
- 11) Sako S, Isozaki H, Hara H et al : Cystic lymphoepithelial lesions of the pancreas and peripancreatic region : report of two cases. *Surg Today* 29 : 467—471, 1999

Lymphoepithelial Cyst of the Pancreas Associated with Carcinoma of the Pancreas : A Case Report

Masatoshi Shigeta, Keiji Okamura, Yuji Fujita,

Yasuhiro Kouchi and Hiroshi Miyashita

Department of Surgery, Social Insurance Tokuyama Central Hospital

We report a rare case of a lymphoepithelial cyst (LEC) of the pancreas associated with pancreatic carcinoma. A 58-year-old man reporting abdominal pain and found to have a cystic mass in the pancreatic tail, and high serum CA19-9 was found in computer tomography and angiography to have a possible cystic neoplasm of the pancreas, possibly a cystoadenocarcinoma. Subsequent distal pancreatectomy diagnosed the mass as LEC. One year later, his serum CA19-9 again was elevated, and a solid cystic lesion was found in the residual pancreas. Endoscopic fine-needle aspiration biopsy showed cancer in the residual pancreas, necessitating total pancreatectomy. LEC is a rare benign cyst of the pancreas lined by squamous epithelium and uncertain of pathogenesis. To our knowledge, this is the first report of LEC of the pancreas associated with pancreatic cancer.

Key words : lymphoepithelial pancreatic cyst, pancreatic cancer

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 38 : 447—451, 2005]

Reprint requests : Masatoshi Shigeta 1st Department of Surgery, Yamaguchi University School of Medicine
1-1-1 Minami-Kogushi, Ube, 755-8505 JAPAN

Accepted : November 30, 2004