

症例報告

成人男性にみられた膵臓の solid pseudopapillary tumor の1例

横浜市立大学大学院消化器病態外科学, 横浜済済会病院外科¹⁾,
横浜市立大学附属市民総合医療センター病理部²⁾

渡辺 一輝 窪田 徹 久保田 香
上田 倫夫 三浦 靖彦¹⁾ 遠藤 格
渡會 伸治 嶋田 紘 佐々木 毅²⁾

症例は41歳の男性で、心窩部痛を主訴に、CTで膵体尾部の嚢胞性腫瘤を指摘された。CT・MRCPからsolid pseudo-papillary tumor (以下、SPTと略記)が疑われ、膵体尾部脾切除術を施行した。腫瘍は4.7×3.0×4.3cmで線維性被膜を有し、被膜外に石灰化がみられ、腫瘍内部では出血や壊死を伴う充実性部分と嚢胞部分が混在していた。組織学的には被膜外の充実性部分に軽度異型性の腫瘍細胞が充実性に増殖しており、内部の充実性部分にも同様の細胞が偽乳頭状・小胞巣状に増殖していた。軽度のリンパ管浸潤と神経周囲浸潤があり malignant potentialをもつSPTと診断した。SPTは比較的良好な経過をたどる腫瘍であるが、その10~20%に悪性例を認め治療の原則は外科的切除である。若年女性に多いことで知られる疾患であるが、本症例のごとく成人男性にも発症することがあるので注意が必要である。

はじめに

膵臓の solid pseudopapillary tumor (以下、SPTと略記)は若年女性に好発し、予後の良好な比較的良好の腫瘍として知られている。しかし、絶対数は少ないものの男性例の報告や、転移や再発の報告もあつた確な診断と治療が必要である。今回、我々は組織学的悪性を有するSPTの成人男性例を経験したので報告する。

症 例

患者：41歳，男性

主訴：上腹部痛

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：5か月前、上腹部痛を主訴に近医を受診し、CTで膵尾部腫瘤を指摘された。症状はすぐに消失したが、悪性を否定できず精査加療目的で当科紹介となった。

入院時現症：身長170cm，体重60kg，腹部は平

坦・軟で上腹部痛は消失しており、圧痛も認めなかった。

検査所見：血液生化学検査、腫瘍マーカーはいずれも正常範囲内であつた。胸腹部X線上も異常を認めなかった。

腹部CT：膵尾部に径4cm，点状から不整形の石灰化を辺縁に有する低吸収域を認めた。造影剤にて腫瘍はただらに描出された。また、一部に嚢胞性変化と考えられる不均一な低吸収域を認めた。肝内に明らかな占居性病変はなく、リンパ節腫大や腹水貯留は認めなかった (Fig. 1)。

MRCP：膵尾部に不整な high intensity lesion を有する嚢胞性病変がみられた。全長にわたり主膵管に拡張や不整は認めなかった (Fig. 2)。

EUS：膵尾部に35×31mm大の嚢胞成分と膵臓よりやや低エコーで充実性部分の混在した腫瘍を認めた。嚢胞は大小不同で周囲には石灰化を伴っていた (Fig. 3)。

以上より、内分泌腫瘍あるいは男性ではあるがSPTを疑い、悪性も否定できなかったことから開腹手術を施行した。

<2005年10月19日受理>別刷請求先：渡辺 一輝
〒236-0004 横浜市金沢区福浦3-9 横浜市立大学大学院医学研究科消化器病態外科学

Fig. 1 A : Abdominal computed tomography showed calcification in the mass in the tail of the pancreas. B : Encapsulated complex, solid and cystic mass in the tail of the pancreas with some internal enhancement.

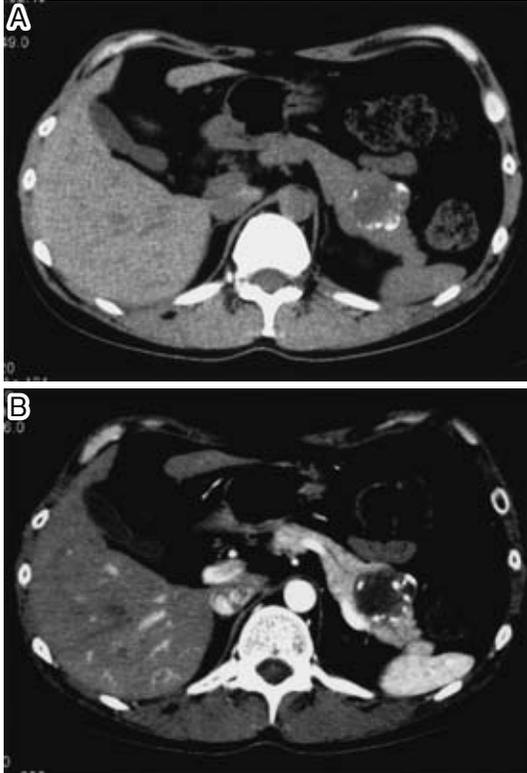


Fig. 2 Magnetic resonance cholangiopancreatography showed a low intensity mass (→) in the tail of the pancreas. There is no dilation or irregular lesion of the main pancreatic duct (△).



Fig. 3 Endoscopic ultrasonography demonstrated the solid (→) and cystic (△) mass with calcification.



Fig. 4 A : Gross appearance of SPT showed well-encapsulated tumor (△). B : Cut section of the tumor revealed a 47×30×43mm-sized, solid and cystic mass (△). Solid parts were formed by bleeding and necrosis tissues. The pancreatic duct (→) was maintained.

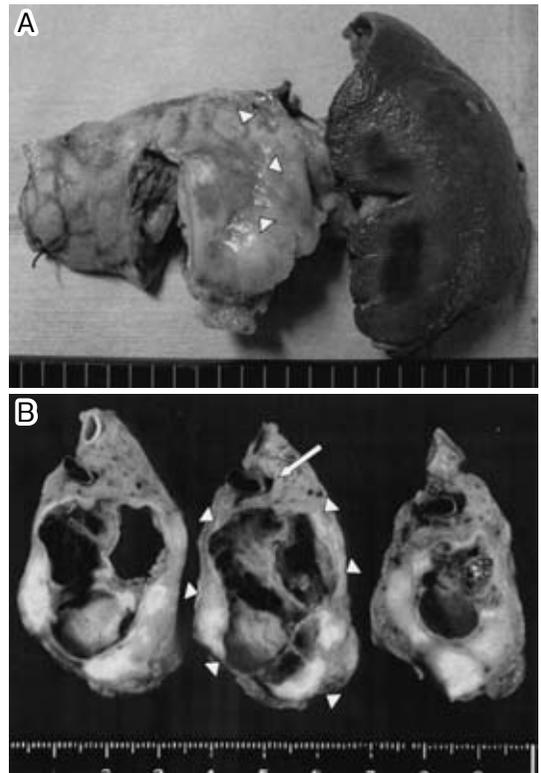
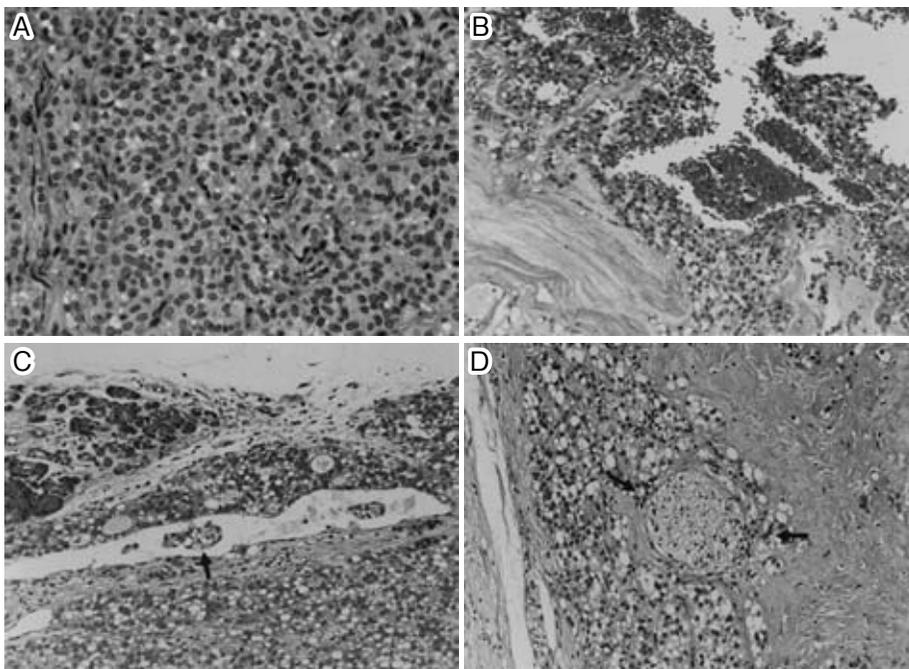


Fig. 5 A : Histologic examination of the tumor showed a more diffuse, sheetlike arrangement of tumor cells. The tumor cells have nuclear atypia. B : There are pseudo-papillary clusters in the cystic spaces. C : Lymphatic invasion was found in the center of the tumor (→). D : Perineural invasion was found in the tumor (↔).



手術所見：術中所見で肝転移，周辺リンパ節転移，腹膜播種を認めなかった．腫瘍は膵体尾部に局限しており，手術は膵体尾部脾切除術を施行した．

摘出標本：腫瘍の大きさは4.7×3.0×4.3cmで厚い線維性被膜を有し，剖面では被膜外に石灰化がみられ，腫瘍内部では出血や壊死を伴う充実性部分と嚢胞部分が混在していた．主膵管は保たれていた (Fig. 4)．

病理組織所見：腫瘍は小型円形あるいは楕円形の，時に小型の核小体を伴う核を有し，好酸性胞体を持つ比較的均一でやや異型に乏しい細胞の増殖よりなり，一部線維性被膜外浸潤が認められた．また，肉眼的に認められた嚢胞部では上述同様の腫瘍細胞が内腔を被い，周囲は硝子化した amorphous な間質であった．免疫組織化学では Chromogranin A が陰性であったが， α 1-Antitrypsin, NSE, Synaptophysin はいずれも陽性を示し，神経

内分泌細胞の性質を有していた．以上より，術前診断どおり SPT と診断したが，腫瘍内にリンパ管侵襲や神経線維周囲浸潤も認められ，malignant potential が示唆された (Fig. 5)．

術後経過：術後経過良好で術後 18 病日に退院した．現在，術後 2 年経過しているが再発の兆候は認められない．

考 察

SPT は分化方向の不明な比較的まれな上皮性腫瘍である．線維性被膜を有する結節性腫瘍で，充実部と出血壊死を伴った嚢胞を形成するのが特徴で，これまで solid cystic tumor とよばれてきた．

若年女性に好発し，発育が緩慢で予後良好な腫瘍として知られている．しかし，医学中央雑誌で，「SPT」「男性」をキーワードとして 1983 年 4 月から 2005 年 7 月までについて検索したところ，75 例の男性例の報告があるように，従来まれとされ

ていた男性例も、全体の10%前後を占めている¹²⁾。吉岡ら³⁾は本邦報告302例の検討を行っているが、男性例は40例(13.2%)であった。また、栗山ら⁴⁾によると性別により臨床病理学的特徴に若干の違いを認め、再発・死亡例に関しては女性例に多く認めるが、症例の絶対数からするとただちに有意差があると結論づけることはできないとしている。現時点においては、男性であっても本疾患を念頭において診療にあたり、性別による差異については今後の症例の蓄積が必要であるといえよう。

また、予後良好な腫瘍と考えられているが、転移・再発⁵⁾⁶⁾がみられることもある。吉岡ら³⁾は302例の集計の中で、膵被膜、実質浸潤は39例(13.0%)、他臓器への転移、浸潤が15例(5.0%)、再発が16例(5.3%)であったと報告している。本症例も malignant potentiality を有しており、転移や再発を考慮した外科的治療、術後経過観察が必要である。

SPTは本来充実性腫瘍であり、時間の経過とともに出血、壊死、石灰化などの退行性変化が起ると考えられている³⁾。そのため、形態学的には腫瘍内部は充実性部分と2次的に出血性壊死を来した嚢胞性部分とがさまざまな割合で混在している。また、腫瘍辺縁部に石灰化を認めることも多い。

術前診断においては、これらの形態学的特徴を画像でとらえる必要がある。典型例ではCTや超音波で診断が可能であるが、より詳細な情報を得るためにはMRIや造影超音波が有効である⁷⁾。

治療としては、手術で腫瘍を除去することが第1選択であり、最も効果的な治療である⁸⁾⁹⁾。予防的リンパ節郭清は不要であり、腫瘍の完全摘出が施行されれば95%以上の症例で根治を期待できる。切除に際しては他臓器や周囲血管への浸潤などの局所進展、リンパ節転移や肝転移を認めても、技術的に可能であれば合併切除により長期生存の可能性が望める¹⁰⁾¹¹⁾。

また、初回手術から10年以上経過して再発する症例もある⁶⁾ことから、術後には長期的な経過観察

が必要である。再発部位は肝臓が多く、再発した場合にも外科的切除が有効である¹²⁾。本症例もリンパ管侵襲と神経浸潤があり、肝臓やリンパ節に再発する可能性があるため、術後の経過観察を慎重に行い、再発が認められた場合には切除を考慮する必要がある。

文 献

- 1) Tomioka T, Inoue K, Yamamoto T et al: Solid and cystic tumor of the pancreas occurring without cyst formation in an adult male. *Int J Pancreatol* **14**: 195—200, 1993
- 2) 門脇嘉彦, 香川茂雄, 味野典文ほか: Solid and cystic tumor (SCT) of the pancreas の1男性例. *消外* **18**: 511—516, 1995
- 3) 吉岡正智, 江上 格, 恩田昌彦ほか: 膵 Solid-Pseudopapillary Tumor の臨床病理学的特徴と外科的治療—本邦報告302例と自験6例について—。胆と膵 **22**: 45—52, 2001
- 4) 栗山直久, 世古口務, 山崎芳生ほか: 健診にて発見された膵 solid-pseudopapillary tumor の1男性例—本邦報告男性例の検討—。日消外会誌 **38**: 86—91, 2005
- 5) 村岡 篤, 鶴野正基, 国土泰孝ほか: 術後8年目に肝転移をきたした Solid cystic tumor の1例. *日臨外会誌* **60**: 196—201, 1999
- 6) Nishikawa K, Nagoshi M, Tsuneyoshi M et al: Papillary cystic tumors of the pancreas. Assessment of their malignant potential. *Cancer* **71**: 82—92, 1993
- 7) Cantisani V, Mortele KJ, Silverman SG et al: MR imaging features of solid pseudopapillary tumor of the pancreas in adult and pediatric patients. *Am J Roentgenol* **181**: 395—401, 2003
- 8) 杉山政則, 鈴木 裕, 跡見 裕ほか: 膵嚢胞性腫瘍の治療方針. *日消病会誌* **101**: 865—871, 2004
- 9) Rebhandl W, Felberbauer FX, Horcher E et al: Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas (Frantz tumor) in children: report of four cases and review of the literature. *J Surg Oncol* **76**: 289—296, 2001
- 10) Robert CM, David SK, Kevin CC et al: Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas: a surgical enigma? *Ann Surg Oncol* **9**: 35—40, 2002
- 11) Guevendi M, Howard JM, Prinz R et al: Papillary cystic and solid tumors. Surgical diseases of the pancreas. Third edition. Lippincott, Philadelphia, Montreal, 1998, p681—693
- 12) Hsueh-Lien H, Shou-Chuan S, Yu-Jan Chan et al: Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas: clinical experience and literature review. *World J Gastroenterol* **11**: 1403—1409, 2005

A Rare Case of Adult Male Solid-Pseudopapillary Tumor

Kazuteru Watanabe, Toru Kubota, Kaori Kubota,
Michio Ueda, Yasuhiko Miura¹⁾, Itaru Endo,
Shinji Togo, Hiroshi Shimada and Takeshi Sasaki²⁾

Department of Gastroenterological Surgery, Yokohama City University Graduate School of Medicine

Department of Surgery, Yokohama Ekisaikai Hospital¹⁾

Department of Pathology, Yokohama City University Medical Center²⁾

A 41-year-old man with epigastralgia found by CT to have a pancreatic cystic mass was diagnosed by CT and MRCP as having a solid pseudo-papillary tumor (SPT) and underwent distal pancreatectomy. The resected specimen showed a 47×30×43mm solid, cystic mass with calcification in the dense capsule. Solid parts were formed by bleeding and necrotic tissues. Histological examination showed a diffuse sheetlike arrangement of tumor cells having nuclear atypia. Pseudo-papillary clusters and lymphatic invasions had occurred in the tumor. These findings suggest aggressive malignant potential. SPTs are reported to be rare and with low malignant potential, and occur mainly in young women. They can, however, occur in men and in all age groups. Complete resection is associated with long-term survival and close follow-up is advisable, particularly when histological examination suggests an aggressive tumor.

Key words : solid pseudo-papillary tumor, pancreatic tumor, solid cystic tumor

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 39 : 347—351, 2006]

Reprint requests : Kazuteru Watanabe Department of Gastroenterological Surgery, Yokohama City University Graduate School of Medicine
3-9 Fukuura, Kanazawa-ku, Yokohama, 236-0004 JAPAN

Accepted : October 19, 2005