

症例報告

画像・肉眼所見で充実性を呈した膵体部漿液性嚢胞腺腫の1切除例

金沢大学付属病院消化器外科, 同 放射線科¹⁾, 同 病理部²⁾

竹下 雅樹 北川 裕久 萱原 正都
高村 博之 谷 卓 太田 哲生
蒲田 敏文¹⁾ 松井 修¹⁾ 湊 宏²⁾

患者は59歳の女性で、健診の腹部超音波検査で膵臓に異常を指摘され、近医受診し、CT、MRIにて膵体部に充実性腫瘤を認めたため、当科紹介入院となった。入院時の身体所見、血液検査では特に異常を認めなかった。CT、血管造影にて膵体部に造影早期から強く濃染される約2cmの充実性腫瘤を認めた。嚢胞成分は伴っていなかったが、MRIのT2強調では血液成分よりも高信号を示し、漿液性の液体成分に富む腫瘤と考えられた。以上より、漿液性嚢胞腺腫が疑われたが、内分泌腫瘍も否定できないため、膵体尾部切除術を施行した。断面の肉眼所見では嚢胞成分は存在せず、充実性腫瘍であったが、病理学的には漿液性嚢胞腺腫と診断された。画像所見、肉眼所見で嚢胞成分を伴わず充実性を呈した膵体部漿液性嚢胞腺腫は極めてまれで、文献的考察を加え報告する。

はじめに

近年の画像診断機器の発達により、膵漿液性嚢胞腺腫はしばしば診断されるが、悪性はまれであることから経過観察が原則とされている。今回、我々は術前画像診断、切除標本肉眼所見で嚢胞成分を認めず、充実性を呈したため、非機能性内分泌腫瘍と鑑別が困難であった膵漿液性嚢胞腺腫を経験したので報告する。

症 例

患者：59歳，女性

主訴：特になし

家族歴：父が膵癌。

既往歴：15歳時に虫垂炎にて虫垂切除術、57歳時に卵巣嚢腫にて卵巣摘出術。

現病歴：健診の腹部超音波検査にて膵臓に異常を指摘され、近医を受診した。CT、MRIにて膵体部に多血性の充実性腫瘤を認めたため、精査加療目的に当科紹介・入院となった。

入院時現症：結膜に貧血、黄疸はみられなかつ

た。腹部は平坦・軟で、圧痛を認めず、腫瘤も触知しなかった。

入院時血液検査所見：血算、一般生化学検査、腫瘍マーカー、血中ホルモン値はいずれも正常範囲内であった (Table 1)。

腹部超音波検査所見：膵体部に直径約2cmの低エコーの腫瘤を認めた。全体に境界は明瞭で、内部エコーはほぼ均一であった (Fig. 1)。

腹部CT所見：腹側に突出した直径約2cmの低吸収域の腫瘤を膵体部に認めた (Fig. 2a)。造影すると早期から膵実質と比べてほぼ均一に強い造影効果を示し、隔壁構造を認めなかった (Fig. 2b)。

腹部血管造影検査所見：動脈相で膵体部に強い腫瘍濃染を認め (Fig. 3a)、脾動脈からの太い栄養血管を認めた。CT arteriographyでも造影CTと同様に早期より強く造影された (Fig. 3b)。

腹部MRI所見：T1強調で低信号、T2強調で血液成分より高信号を示し、腫瘤は漿液性の液体成分に富む腫瘤と考えられた。造影ではほぼ均一な強い造影効果を認めた (Fig. 4a~d)。

内視鏡的逆行性膵管造影検査 (ERP)：内視鏡肉

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	4,100 / μ l	LDH	170 IU/l
RBC	437×10^4 / μ l	AMY	51 IU/l
Hb	13.4 g/dl	TG	94 mg/dl
Ht	40.1 %	T-Cho	211 mg/dl
Plt	17.7×10^4 / μ l	FBS	100 mg/dl
Na	141 mEq/l	HCV-Ab	(-)
K	4.0 mEq/l	HBs-Ag	(-)
Cl	105 mEq/l	CEA	3.2 ng/ml
BUN	19 mg/dl	CA19-9	8 U/ml
Cr	0.61 mg/dl	DUPAN-2	< 25 U/ml
TP	7.1 g/dl	gastrin	82 pg/ml
T-B	0.9 mg/dl	insulin	3.8 μ U/ml
ALP	131 IU/l	glucagon	155 pg/ml
γ -GTP	11 IU/l	somatostatin	11 pg/ml
GOT	17 IU/l	vasoactive intestinal polypeptide (VIP)	93 pg/ml
GPT	13 IU/l	pancreatic polypeptide	587 pg/ml

Fig. 1 Abdominal ultrasonography showed a homogeneous low echoic mass, about 2cm in diameter with clear margin in the body of the pancreas.



眼検査所見では、乳頭に異常を認めなかった。ERP像では、2次分枝までの描出は良好で、膵管の途絶、狭窄、偏位を認めなかった (Fig. 5)。

以上の所見より、漿液性嚢胞腺腫が疑われたが、充実性で嚢胞成分が存在しないため、内分泌腫瘍も否定できず、手術を施行した。

手術所見：開腹すると腫瘍は膵体部の腹側に突出して存在していた。周囲への浸潤、リンパ節の腫脹はなかった。腫瘍縁より約2cm頭側に断端を確保して膵体尾部切除術を施行した。

切除標本肉眼検査所見：1.9×1.5×1.0cmの黄

白色で充実性の腫瘍であり、被膜に覆われ周囲への浸潤はなかった。嚢胞構造を認めなかった (Fig. 6)。

病理組織学的検査所見：腫瘍は被膜を有し、正常膵組織への浸潤傾向はなかった (Fig. 7a)。HE染色では、直径2~15 μ mである小型の腺腔形成を示しており、嚢胞壁は均一で淡明な腫瘍細胞からなる1層の立法上皮に覆われていたが、異型性は認めなかった (Fig. 7b)。細胞質内にはPAS染色陽性顆粒が豊富に見られたが、それらはジアスターゼ処理で消化され、グリコーゲン顆粒であった (Fig. 7c, d)。以上より、漿液性嚢胞腺腫と診断された。

考 察

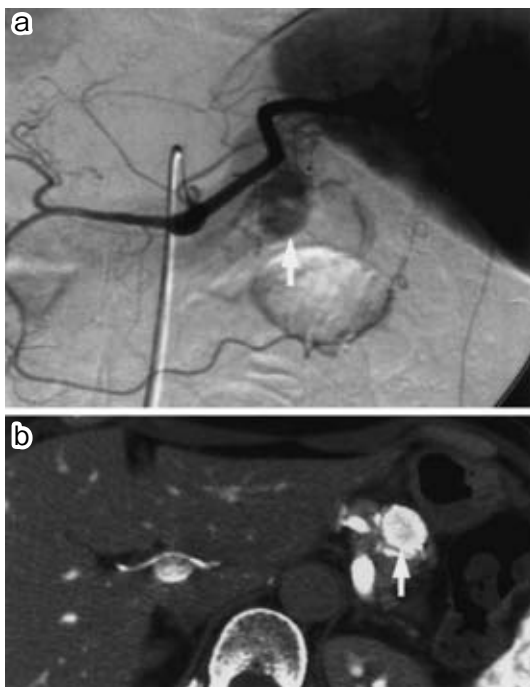
嚢胞腺腫は、1978年にHodgkinsonら¹⁾²⁾、Compagnoら³⁾⁴⁾により病理組織学的に漿液性 (serous type) と粘液性 (mucinous type) に大別された。漿液性嚢胞腺腫は、腺房中心細胞由来であり、小さな嚢胞の集簇よりなり、腫瘍細胞は胞体内にグリコーゲン顆粒を豊富にもつ立方細胞からなるため、glycogen-rich cystadenomaとも呼ばれる⁵⁾。

以前は比較的まれな疾患とされていたが、画像診断の進歩により健診などで偶発的に発見される症例が増えており、典型的な小嚢胞の集簇よりなる蜂巣状構造を呈するもの以外に単房性のもの

Fig. 2 a: Plain abdominal CT scan showed low density area in the body of the ventral pancreas. b: Enhanced CT scan showed the enhanced tumor in the same part.



Fig. 3 a: Angiography showed hypervascular tumor in the body of the pancreas. b: CT Arteriography showed the enhanced tumor in the body of the ventral pancreas.



や、嚢胞構造を認識できないものまでさまざまな肉眼形態をとることがわかってきた。これらについて国際的な分類はなく、欧米ではB. Perz-Ordenez⁶⁾が肉眼的に嚢胞成分を有さず切除標本の免疫組織学的検索によってのみ serous cystadenoma と診断可能だった症例を報告し、solid variant of serous cystadenoma という概念を提唱しているが、他に報告例はない。本邦では一二三

ら⁷⁾が肉眼検査所見や画像所見より小嚢胞腔のみで構成される microcystic type (type1) と大きな嚢胞腔を有する macrocystic type (type2) に分類し、さらに type1 は数 mm 単位の小嚢胞腔から構成される蜂巢状の honeycomb type (type1a) と、肉眼的には嚢胞部分を認識できず組織学的検索によってのみ診断可能な solid type (type1b) に分類している。医学中央雑誌で、「膵漿液性嚢胞腺腫」「充実性」をキーワードとして1983年1月から2005年12月までについて検索したところ、画像所見、肉眼所見が充実性を呈した solid type の膵漿液性嚢胞腺腫の本邦報告例は自験例を含めて11例であった (Table 2)^{8)~17)}。

これらの報告にもあるように、solid type は単純CTにて充実性腫瘍を呈し、造影CTや血管造影にて腫瘍全体に強い造影効果がみられるため、内分泌腫瘍と鑑別が困難といわれている。MRIにおいて充実性の膵漿液性嚢胞腺腫はT1強調で low intensity, T2強調で high intensity を呈するという報告は見られる¹⁴⁾。しかし、内分泌腫瘍も一般的には非常に血流に富む腫瘍であるため、類似した intensity を呈する。我々は膵漿液性嚢胞腺腫が肉眼的には充実性であろうとも、漿液性の液体成分を有した微小な嚢胞の集簇であることに着目し、T2強調画像で血液成分よりも high intensity を呈するのではないかと考えた。本症例の腫瘍はT2強調画像で血液成分よりも high intensity を呈したため、内分泌腫瘍より漿液性嚢胞腺腫の可能性が高いと判断された。

膵漿液性嚢胞腺腫のほとんどは良性疾患とされており、診断された場合、多くは経過観察とされ

Fig. 4 a : MRI showed a low intensity lesion in the body of the pancreas on a T1-wedged image. b : enhanced lesion on a enhanced T1-wedged image. c : and a high intensity lesion on a T2-wedged image. d : MRCP showed a high intensity lesion in the body of the pancreas.

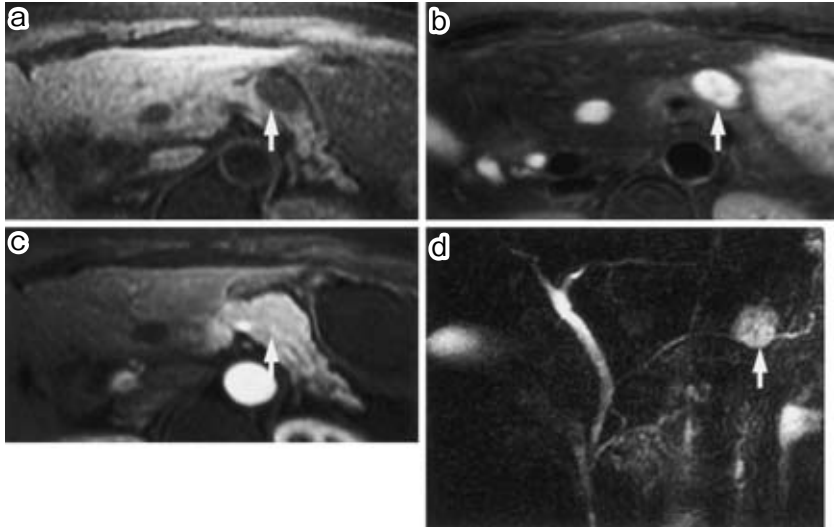
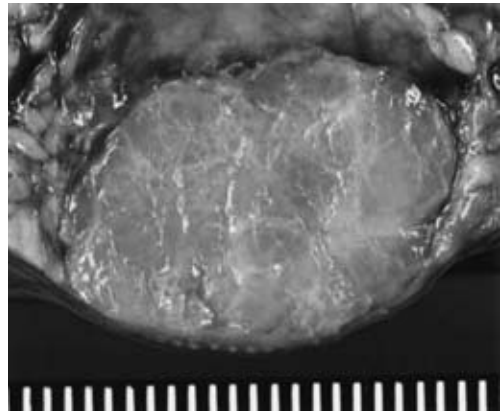


Fig. 5 ERP showed no abnormality at major pancreatic duct.



Fig. 6 Macroscopic findings of the surgical specimen showed clear margin tumor was yellowish white in color about 1.9×1.5×1.0cm in diameter with solid structure. Its tumor was no cystic lesion.



ている。しかし、1989年のGeorgeら¹⁸⁾の報告に始まり、少数の悪性の報告例があり、病理組織像での鑑別は難しく、悪性との判断については、肝転移、リンパ節転移、神経または血管周囲浸潤が存在した場合に成されている¹⁹⁾²⁰⁾。しかし、これらが膵腫瘍からの転移、浸潤であることを証明するには、Ohtaら²¹⁾は肝転移と診断する際に、①膵臓の漿液性嚢胞腺腫が悪性化した、②膵腫瘍がもとも

と悪性であった、③ multicentric serous adenomaであったなどの検証が必要であるとしている。また、Yoshimiら²²⁾は膵腫瘍が他臓器の漿液性嚢胞腺腫の膵転移である可能性も否定しなければならないとしている。その中で、手術適応となるものは渡辺ら²³⁾によると、①膵管内乳頭粘液性腫瘍、粘

Fig. 7 a : Microscopic findings of resected specimens showed the tumor had a film, and there was not the invasive tendency (H-E staining $\times 40$). b: The solid part uniformed colonies of microscopically small cysts (H-E staining $\times 200$). c, d : A PAS dyeing positive granule was seen in cytoplasm abundantly, and it was digested by diastase processing, it was thought with a glycogen granule (c : PAS staining $\times 400$ d : D-PAS staining $\times 400$).

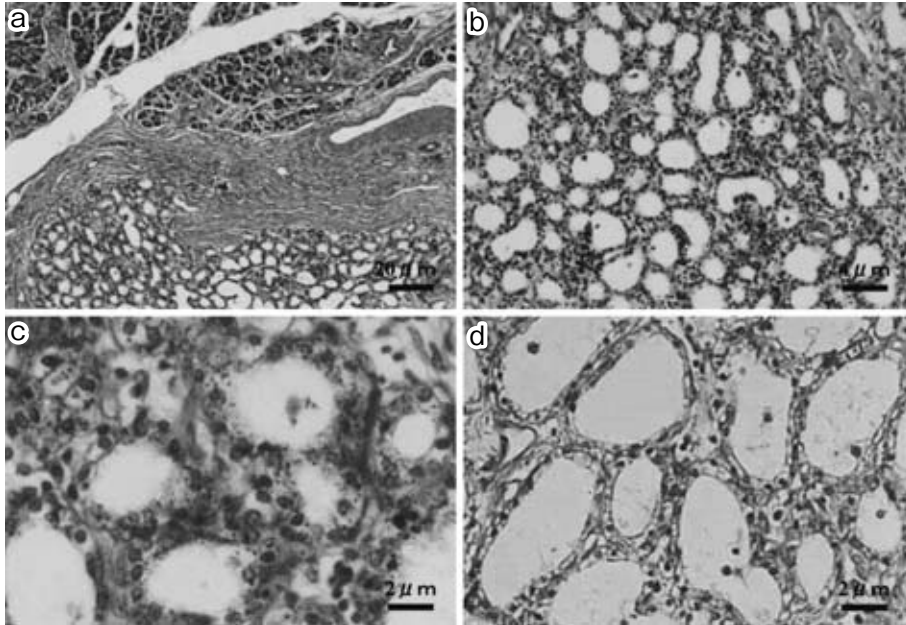


Table 2 Reported cases of pancreatic serous cystadenoma suggested solid tumor by imaging diagnosis and macroscopic findings

No.	Author/Year	Age/Sex	Preoperative diagnosis	Site	Size (cm)	US : Internal echo/Internal structure	CT : plain/enhance	Angiography	MRI
1	Naganuma ⁸⁾ /1990	51/M	Endocrine tumor (ET)	Head	1.7	low/homogenous	low/weak	hyper	none
2	Kambayashi ⁹⁾ /1991	59/F	ET or Serous cyst adenoma (SCA)	Head	4.0	low/homogenous	low/strong	hyper	T1 : unknown T2 : very high
3	Hihumi ¹⁰⁾ /1997	39/F	ET	Body	2.0	low/heterogenous	low/strong	hyper	none
4	Negami ¹¹⁾ /2000	68/F	ET	Body	1.1	low/unknown	low/strong	hyper	T1 : low T2 : high
5	Yamada ¹²⁾ /2001	63/M	ET	Body	4.0	low/homogenous	low/strong	hyper	T1 : low T2 : high
6	Mouri ¹³⁾ /2003	75/F	ET	Head	5.5	high/heterogenous	low/strong	hyper	T1 : low T2 : high
7	Ueda ¹⁴⁾ /2003	60/M	ET	Head	1.4	low/homogenous	low/strong	hyper	T1 : low T2 : high
8	Inoue ¹⁵⁾ /2003	57/F	ET	Tail	2.4	low/homogenous	low/strong	hyper	T1 : low T2 : high
9	Chubachi ¹⁶⁾ /2003	71/M	Ductal carcinoma	Head	3.5	high/homogenous	low/strong	hyper	T1 : low T2 : high
10	Itoh ¹⁷⁾ /2004	51/F	ET	Body	2.0	low/homogenous	none / strong	hyper	none
12	Our case	59/F	SCA	Body	1.9	low/homogenous	low/strong	hyper	T1 : low T2 : very high

液性嚢胞腫瘍，内分泌腫瘍などとの鑑別が困難なタイプで，悪性病変を疑う場合，②有症状例（腹痛，背部痛，黄疸，尾側主膵管の拡張など），③急激な増大例，④10cmに達する巨大症例，としており，今回，我々の症例は無症状で，腫瘍径も大きくないが，嚢胞構造がみられず solid type であるために内分泌腫瘍を否定しきれず手術を行った。

今後，CTなどで膵臓に同様の腫瘍を認めた場合，内分泌腫瘍との鑑別として，MRIを施行し，同様の所見が得られれば，漿液性嚢胞腺腫として経過観察できる。

文 献

- Hodgkinson DJ, Remine WH, Weiland LH : Pancreatic cystadenoma, a clinicopathologic study of 45 cases. *Arch Surg* **113** : 512—519, 1978
- Hodgkinson DJ, Remine WH, Weiland LH : A clinicopathologic study of 21 cases of pancreatic cystadenocarcinoma. *Ann Surg* **188** : 679—684, 1978
- Compagno J, Oertel JE : Microcystic adenomas of the pancreas (Glycogenrich cystadenoma) a clinicopathologic study of 34 cases. *Am J Clin Pathol* **69** : 289—298, 1978
- Compagno J, Oertel JE : Mucinous cystic neoplasms of the pancreas with overt and latent malignancy (cystadenocarcinoma). A clinicopathologic study of 41 cases. *Am J Clin Pathol* **69** : 573—580, 1978
- 海堀昌樹，高井惣一郎，小池保志ほか：膵管癒合不全を伴った膵漿液性嚢胞腺腫の1例。日臨外会誌 **62** : 3035—3039, 2001
- Perez-Ordenez B, Naseem A, Liberman PH et al : Solid serous cystadenoma of the pancreas. The solid variant of serous adenoma? : a new entity? *Am J Surg Pathol* **20** : 1401—1405, 1996
- 一二三倫郎，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
- 長沼晶子，石田秀明，五十嵐潔ほか：漿液性膵嚢胞腺腫の2例。Jpn J Med Ultrasonics **17** : 87—93, 1990
- 上林正昭，小笠原実，須貝 茂ほか：膵頭部の漿液性嚢胞腺腫の1例—腫瘍形態からみた画像と鑑別診断—。画像診断 **11** : 97—101, 1991
- 一二三倫郎，川口 哲，山根隆明ほか：膵内分泌腫瘍との鑑別が困難した膵漿液性嚢胞腺腫 (serous cystadenoma : solid type) の1例。胆と膵 **18** : 893—897, 1997
- 根上直樹，三橋宏章，織畑道宏ほか：膵漿液性嚢胞腺腫の1例。日臨外会誌 **61** : 1562—1566, 2000
- 山田卓也，伊藤英夫，角 泰廣ほか：膵内分泌腫瘍との鑑別が困難であった膵漿液性嚢胞腺腫の1例。日臨外会誌 **62** : 2279—2283, 2001
- 毛利律生，山本 滋，青木理恵ほか：術前診断に苦慮した膵漿液性嚢胞腺腫の1例。広島医 **56** : 503—507, 2003
- 上田順彦，大場 大，八木治雄ほか：膵内分泌腫瘍と鑑別が困難であった膵漿液性嚢胞腺腫の1例。臨外 **58** : 1269—1272, 2003
- 井上 浩，中山吉福，濱田義浩ほか：膵 Solid Serous Adenoma の1例。消化器画像 **5** : 609—612, 2003
- 中鉢誠司，内田 孝，奥山吉也：膵頭部悪性腫瘍が疑われた solid type の漿液性嚢胞腺腫の1例。日臨外会誌 **64** : 3144—3147, 2003
- 伊藤将倫，竹田欽一，鶴飼宏司ほか：膵漿液性嚢胞腺腫 sold variant type の1例。超音波医 **31** : J361—J366, 2004
- George DH, Murphy F, Michaiski R et al : Serous cystadenocarcinoma of the pancreas : a new entity? *Amr J Surg Pathol* **13** : 61—66, 1989
- 福山尚治，武田和憲，松野正紀：文献的検索 (国内・海外) からみた悪性 SCT。胆と膵 **24** : 265—267, 2003
- 武田和憲：膵漿液性嚢胞腺癌。胆と膵 **22** : 25—27, 2001
- Ohta T, Nagakawa T, Itoh H et al : A case of serous cystadenoma of the pancreas with focal malignant changes. *Int J Pancreatol* **14** : 283—289, 1993
- Yoshimi N, Sugie S, Tanaka T et al : A rare case of serous cystadenocarcinoma of the pancreas. *Cancer* **69** : 2449—2453, 1992
- 渡辺五朗，松田正道，橋本雅司ほか：Serous Cystic Tumor (SCT) の手術適応—自験例17例の検討と手術適応についての考察—。胆と膵 **24** : 303—310, 2003

A Case of Pancreatic Serous Cystadenoma suggested Solid Tumor by Imaging Diagnosis and Macroscopic Findings

Masaki Takeshita, Hirohisa Kitagawa, Masato Kayahara,
Hiroyuki Takamura, Takashi Tani, Tetsuo Ohta,
Toshifumi Gabata¹⁾, Osamu Matsui¹⁾ and Hiroshi Minato²⁾

Department of Gastroenterological Surgery, Department of Radiology¹⁾ and Department of Pathology²⁾,
Graduate School of Medicine Science, Kanazawa University

A 59-year-old woman was admitted to our hospital because of suspicion of a tumor of the pancreatic body based on the abdominal ultrasound findings during a periodic medical checkup. Blood biochemical, tumor marker, and pancreatic endocrine hormone testing yielded no abnormal findings. The tumor was strongly enhanced by abdominal contrast-enhanced CT and angiography, and differentiated from a pancreatic non-functioning endocrine tumor. MRI showed that the tumor contained a large serous portion, and pancreatic serous cystadenoma was suspected. Distal pancreatectomy was performed. Sectioning of the tumor revealed a solid structure and no cysts. The histopathological diagnosis was serous cystadenoma. We report a case of pancreatic serous cystadenoma that appeared to be a solid tumor based on the diagnostic imaging and macroscopic findings.

Key words : pancreatic serous cystadenoma, pancreatic endocrine tumor, solid tumor

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 39 : 1827—1833, 2006]

Reprint requests : Masaki Takeshita Department of Gastroenterological Surgery, Keiju Medical Center
94 Tomioka-machi, Nanao, 926-8605 JAPAN

Accepted : April 26, 2006