

症例報告

## 漿液性膵嚢胞腺腫に膵頭部癌を合併した1例

香川県立中央病院外科

泉 貞言 小野田裕士 塩田 邦彦

症例は72歳の男性で、検診目的の腹部USで膵頭部に3cm径の腫瘤を指摘された。腹部CT・MRCP・ERCPでは多血性で主膵管と交通のない微小嚢胞からなる腫瘤で漿液性膵嚢胞腫瘍 (serous cystic tumor; 以下, SCT) と診断した。また, MRCPでSCTと離れた膵頭体部主膵管に狭窄を認め, ERCP時に細胞診を施行したがclass IIであった。腹部Dynamic-CT上は狭窄部に一致して膵頭体部2×1cmの範囲が早期相でlow densityを呈し後期相で淡く造影され膵癌合併の可能性が示唆された。Positron emission tomography/CTでは主膵管狭窄部に有意な集積を認めず, SCT部にて軽度集積を認めるもmaximum standardized uptake valueは早期2.93/後期2.21で悪性パターンを示さなかった。平成18年11月膵頭部十二指腸切除術を施行したところ, 漿液性膵嚢胞腺腫 (serous cystic adenoma; 以下, SCA) と1.5cm径の膵癌を上記CT部位に一致して認めた。今回, SCAに膵癌を合併した極めてまれな症例を経験したので報告した。

### はじめに

膵外分泌腫瘍の1%, 膵嚢胞性腫瘍の4~10%といわれるまれなserous cystic tumor (以下, SCT) は基本的に良性腫瘍であるが極めてまれに悪性例も存在する<sup>1)</sup>。また, 本来膵管系とは交通がないといわれているが, 時に膵管の狭窄を呈することが報告されている<sup>2)</sup>。原因としては炎症や圧排によるものがほとんどであるが画像的に良悪の鑑別は困難である。今回, 膵頭部癌合併が原因で主膵管狭窄を来したserous cystic adenoma (以下, SCA) の1手術例を経験したので報告する。

### 症 例

患者: 72歳, 男性

主訴: 検診発見

既往歴: 糖尿病。

現病歴: 特に症状はなかったが, 平成18年8月に近医で受けたドック検診の腹部超音波検査にて膵頭部に3cm径の腫瘤が判明した。腹部CT・MRCP・ERCPなど精査の結果, 主膵管狭窄を来

したSCTが疑われ, 当院へ加療目的で紹介となった。

入院時現症: 腹部平坦・軟。

血液生化学検査所見: 血液一般検査は正常範囲内であった。生化学検査はHbA1C 6.7%, 空腹時血糖値156mg/dlと高血糖状態を呈したほかは正常範囲内であった。血中ホルモンはインスリン・グルカゴン・ガストリン・5-HIAAいずれも正常範囲内であった。腫瘍マーカーはCA19-9が42UL/dlと軽度の上昇を認めたもののCEAやSPAN-1は正常範囲内であった。

腹部超音波検査所見: 膵頭部腹側に3cm径で内部高エコーの充実性腫瘤とその頭側の主膵管狭窄および尾側膵管の拡張を認めたが, 他の部位に明らかな腫瘍性病変は認められなかった。

MRCP: 内部に微小嚢胞の集簇を認める腫瘤とその頭側に位置する主膵管の2cmにわたる狭窄およびその尾側膵管の著明な拡張を認めた (Fig. 1)。

腹部CT: Dynamic-CTにて, 膵頭部に早期相でよく造影され後期相でlow densityを呈する3cm径の円形腫瘤 (Fig. 2a, b) と, その頭側で主膵

<2008年4月23日受理>別刷請求先: 泉 貞言  
〒760-8557 高松市番町5-4-16 香川県立中央病院外科

**Fig. 1** MRCP showed a 3cm mass with multiple microcysts (arrow) and stenosis (arrow heads) of the MPD above the mass.



管狭窄部に一致したところにて早期相で不均一に low density を呈し後期相では淡く造影される不整形領域を認めた。Multiplanner reformation (以下, MPR) 画像にて膵頭体部 2×1cm の範囲が上記パターンを呈し, 尾側の円形腫瘍との連続性は認められなかった (Fig. 2a, b)。

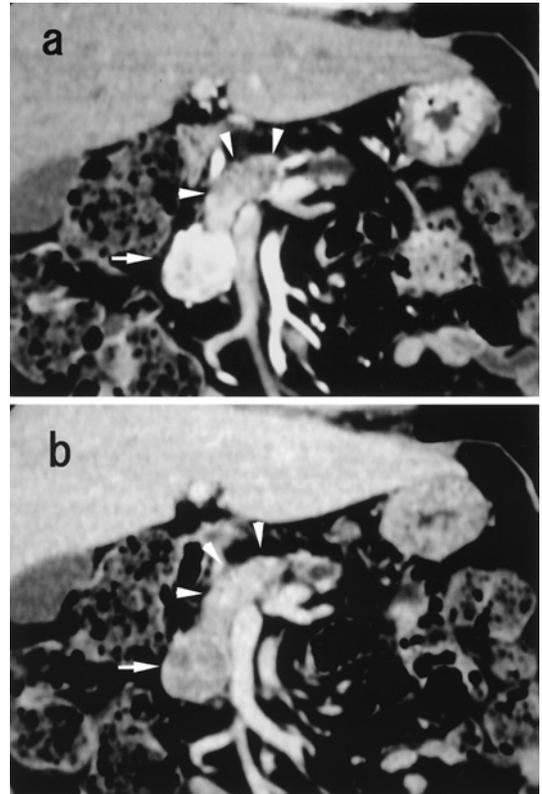
腹部 positron emission tomography (以下, PET)/CT: 膵頭部腹側 3cm の腫瘍は軽度  $^{18}\text{F}$ -fluorodeoxyglucose の集積を認めたが, maximum standardized uptake value は早期 2.93, 後期 2.21 で悪性パターンは得られなかった。また, 膵頭体部の 2cm にわたる主膵管狭窄部に一致した集積所見は認められなかった (Fig. 3)。

腹部血管造影検査: 腹腔動脈造影検査にて胃十二指腸動脈分岐の流域に 3cm 大の辺縁明瞭な腫瘍染を認めた (Fig. 4)。一方, 上腸間膜動脈・門脈系脈管において明らかな異常所見は認められなかった。

ERCP: 膵管造影検査では MRCP 画像と同様の部位にて壁不整や狭窄所見を認め (Fig. 5), 膵液細胞診は class II であった。胆管造影検査では異常所見は認められなかった。

以上より, 主膵管狭窄を伴った膵 SCT と診断した。主膵管狭窄部と SCT は離れており SCT による 2 次的変化とは考えにくく, 細胞診や PET で悪性所見は得られなかったものの画像的には膵癌

**Fig. 2** a: Dynamic CT at early phase showed the well-enhanced SCT (arrow) and low-density (arrow heads) in the same area as the MPD stenosis. b: Dynamic CT at late phase showed low-density (arrow) in the SCT and slight enhancement (arrow heads) in the area of the MPD stenosis.

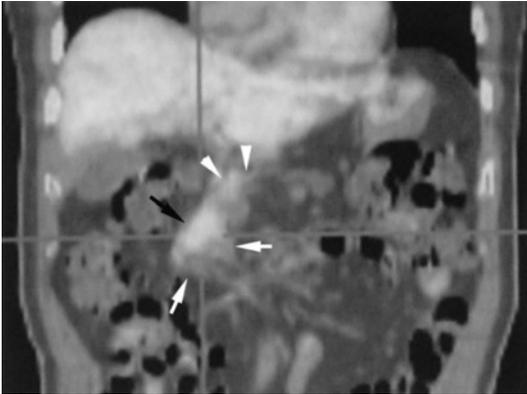


合併による主膵管狭窄の可能性が最も考えられたため平成 18 年 12 月上旬手術を施行した。

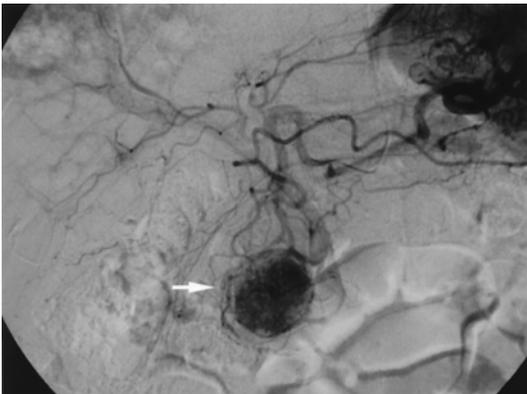
手術所見: 開腹したところ膵頭部腹側に表面膨隆性で 3cm 径の嚢胞形成性腫瘍を認めた。一方, 膵頭体部の膵管狭窄部分の膵実質は腫瘍様に硬く触知するも背景膵がやや硬化しておりその境界は不明瞭であった。膵癌合併の可能性を考慮して幽門輪温存膵頭部十二指腸切除術および D2 郭清を施行した。膵生検は播種のリスクを考え施行しなかった。

摘出標本検査所見: SCT は大きさ 3.2×2.2cm, 黄白色スポンジ様で小嚢胞の集簇を認め, 周囲膵実質との境界は明瞭であった (Fig. 6a)。また, そ

**Fig. 3** PET/CT indicated the slight accumulation (black arrow) in the SCT (arrows), but no significant accumulation (arrow heads) in the area of the MPD stenosis.



**Fig. 4** Angiography showed a hypervascular mass (arrow) that was equivalent to the SCT.



のやや頭側に灰白色充実性で境界不明瞭な大きさ  $1.5 \times 1.3 \text{ cm}$  の不整形腫瘍を認めた (Fig. 6b).

病理組織学的検査所見：SCTは大小囊胞の集簇から形成されており，囊胞内面を被う単層上皮は扁平ないし立方状で淡明な胞体と小型の核を有する異型に乏しい細胞で構成されていた (Fig. 7a). なお，PAS染色陽性で胞体内グリコーゲンの存在が確認された．間質には毛細血管の増生が目立つも血管浸潤など悪性所見は認められずSCAと診断された．もう一方の病変は，膵管上皮の乳頭状増生が目立つ中分化型浸潤性膵管癌であっ

**Fig. 5** ERP showed irregularity and stenosis (arrow heads) of the MPD.



たが，SCAとの連続性は認められなかった (Fig. 7b). CH・DU・S・RP・PV・A・PL・OOはすべて陰性，INFr ly1 v0 ne1 mpd 陰性で周囲組織への浸潤傾向は軽度であった．しかしながら，#8pリンパ節に1個転移を認めたため，T1N2M0でStage 3となった．背景膵の脂肪浸潤や線維化などは軽度であった．

術後経過は良好で術後21病日に退院した．約1年4か月経過の現在，血液検査・腹部CTにて再発所見認めず外来通院中である．

#### 考 察

SCTは膵外分泌腫瘍の1%，膵嚢胞性腫瘍の4～10%を占める比較的まれな腫瘍といわれている<sup>1)</sup>．一方，肝転移や脈管侵襲を認め嚢胞腺癌と診断された報告があるものの頻度的には極めてまれである<sup>3)</sup>．したがって，基本的には良性腫瘍と考えられるため諸所見で悪性所見が認められなければ経過観察でかまわないとする意見もある<sup>4)5)</sup>．しかしながら，腫瘍径が大きい場合，症状を有する場合，経過中に増大傾向が明らかな場合，粘液性嚢胞腺腫や非機能性内分泌腫瘍との鑑別が困難な場合，腫瘍による圧排などで膵管や胆管狭窄を来し，悪性腫瘍との鑑別が困難な場合などでは切除が選択されることになる<sup>5)~7)</sup>．

Fig. 6 a : Macroscopic findings of the SCT showed a sponge like appearance (arrows). b : A whitish-yellow hard mass (arrow heads) was recognized in the cut surface of the MPD stenosis.

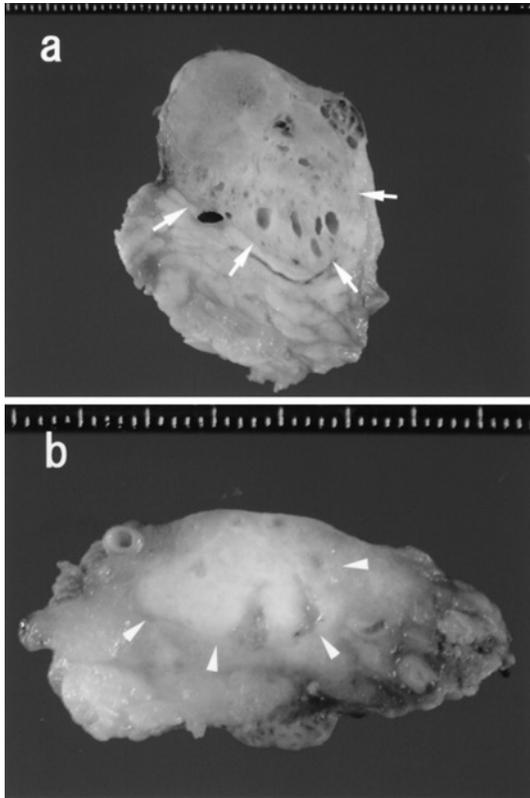
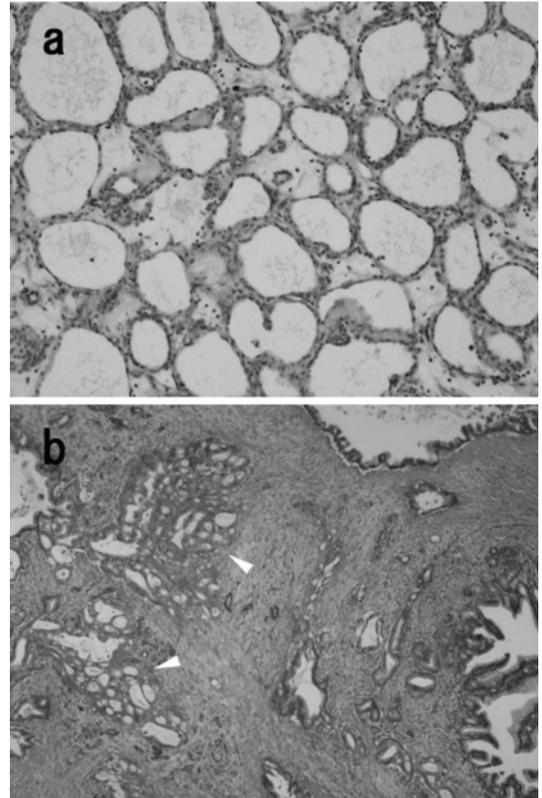


Fig. 7 a : Microscopic findings of the SCT showed multiple microcysts and cuboidal epithelial cells without evident atypia inside of the lumen. b : A moderately differentiated ductal adenocarcinoma (arrow heads) with papillary growth in the pancreatic duct was recognized in the area of the MPD stenosis.



本症例の場合、MRCP画像にて特徴的な微小嚢胞の集簇を認めSCTの診断がなされたものの、血管造影検査上は濃染腫瘍として描出され膵内分泌腫瘍との鑑別が問題になると思われた。治療法であるが3cmのSCTと診断された場合、一般的には経過観察が選択されることになると思われる。今回は、画像的にSCTと膵癌の合併が最も考えられたため十分な説明のうえ、切除の選択となった。病理組織学的検査結果も膵癌であったが、実際は随伴性膵炎や圧排による膵管狭窄例が大部分である<sup>2)</sup>。「膵管狭窄」、「膵漿液性嚢胞腫瘍」、「膵癌」をキーワードにして医学中央雑誌(1983年~2007年)・MEDLINE(1977年~2007年)で文献検索したところSCAの膵癌合併例はこれまでに4症例

報告<sup>8)~10)</sup>があるのみであった。そのうち、膵管狭窄の記述があったのはNodellら<sup>10)</sup>の報告のみであった。本邦での報告はこれまでになく本例が1例目であった。山中ら<sup>2)</sup>はSCTについて膵管狭窄例と非狭窄例を比較したところ膵頭体部に多く、随伴性膵炎を伴うため腫瘍径が小さいうちに発見されるも質的診断が困難で術前悪性と診断されるものが多かったと報告している。本症例を改めて検討してみた。ERCP・MPCP画像で膵管狭窄部位は全周性に壁不整を呈し、MDCTのMPR画像で膵管狭窄部に一致した膵実質に不整な腫瘤影を認めるもSCTと明らかに離れて連続性がないな

と随伴性膵炎や圧排による狭窄ではなく、膵癌を疑う有意な所見が得られている。腫瘤形成性膵炎との鑑別もあがったが、これまでに膵炎様症状なく、画像的に体尾部の膵管拡張を認めるも石灰化所見など慢性膵炎としての有意な所見がないことから、やはり膵癌合併の可能性を術前から十分に考慮すべき症例であったと思われる。また、術前画像的に有意な癌の所見が得られている場合は十分な説明を行ったうえで定型的な癌の手術を施行すべきかと考える。なお、PETで陽性を示さなかったがこれは糖尿病の影響によるかと考える。また、細胞診で悪性所見が得られなかったのは技術的要因によるかと思われた。

膵嚢胞性腫瘍としてSCTより発生頻度の高いintraductal papillary-mucinous tumor (以下、IPMT) に関しては、他臓器癌(23.8~35.7%)や膵癌(9%)などの重複発癌率が高いと報告されている<sup>6)11)</sup>。SCTについても上田ら<sup>12)</sup>は他臓器癌の合併が13%に認められたと報告している。一方、膵癌合併報告例<sup>8)~10)</sup>はこれまでに自験例含めて5例(本邦報告は1例)である。本邦でのSCT発生頻度は年間約20例と報告されており<sup>1)</sup>、膵癌合併率が高いか否かは今後の症例集積が待たれる。また、SCT患者の多くにvon Hippel-Lindau tumor suppressor gene 領域の異常が認められたことなど報告されており<sup>13)</sup>、SCTを認めること自体IPMT症例の様に癌のハイリスク因子なのかもしれない。今後は膵癌再発のみならず他臓器発癌に対する十分な定期検査が必要かと思われる。

## 文 献

- 1) 信川文誠, 須田耕一, 高瀬 優ほか: 漿液性膵腫瘍をめぐる最近の話題. 病理と臨 22: 781—785, 2004
- 2) 山中秀高, 小野 要, 佐藤達郎ほか: 膵管狭窄を伴った膵漿液性嚢胞腺腫の1例. 日消外会誌 38: 1590—1595, 2005
- 3) Le Borgne J, de Calan L, Partensky C et al: Cystadenomas and cystadeno-carcinomas of the pancreas: a multiinstitutional retrospective study of 398 cases. Ann Surg 230: 152—161, 1991
- 4) Pyke CM, van Heerden JA, Colby TV et al: The spectrum of serous cyst adenoma of the pancreas. Ann Surg 215: 132—139, 1992
- 5) Bassi C, Salvia R, Molinari E et al: Management of 100 consecutive cases of pancreatic serous cystadenoma: wait for symptoms and see at imaging or vice versa? World J Surg 27: 319—323, 2003
- 6) 杉山政則, 鈴木 裕, 阿部展次ほか: 膵嚢胞性腫瘍の治療方針. 日消誌 101: 865—871, 2004
- 7) 藤井秀樹, 板倉 淳, 松田政徳ほか: 膵漿液性嚢胞腺腫(SCT)の画像診断と治療方針. 肝・胆・膵 44: 45—53, 2002
- 8) Posniak HV, Olson MC, Demos TC: Coexistent adenocarcinoma and microcystic adenoma of the pancreas. Clin Imaging 15: 220—222, 1991
- 9) Montag AG, Fossati N, Michelassi F: Pancreatic microcystic adenoma coexistent with pancreatic ductal carcinoma. A report of two cases. Am J Surg Pathol 14: 352—355, 1990
- 10) Nodell CG, Freeny PC, Dale DH et al: Serous cystadenoma of the pancreas with a metachronous adenocarcinoma. Am J Roentgenol 162: 1352—1354, 1994
- 11) 岡山順司, 庄 雅之, 池田直也ほか: 膵全摘を施行したintraductal papillary-mucinous tumor合併通常型膵管癌の1例. 日消外会誌 40: 734—740, 2007
- 12) 上田純志, 相本隆幸, 内田英二ほか: 早期胃癌を合併した膵体尾部漿液性嚢胞腺腫の1例. 膵臓 20: 471—476, 2005
- 13) Vortmeyer AO, Lubensky IA, Fogt F et al: Allelic deletion and mutation of the von Hippel-Lindau (VHL) tumor suppressor gene in pancreatic microcystic adenomas. Am J Pathol 51: 951—956, 1997

## A Case of Serous Cystic Adenoma Coexistent with Pancreas Head Carcinoma

Sadanobu Izumi, Yuji Onoda and Kunihiko Shiota

Department of Surgery, Kagawa Prefectural Central Hospital

A 72 year old man found in abdominal US to have a 3cm mass in the pancreas head was also found in abdominal computed tomography (CT), MRCP, and ERCP to have a hypervascular microcystic tumor having no communication with the main pancreatic duct (MPD), and thus diagnosed as a serous cystic tumor (SCT). MRCP showed stenosis of the MPD above the SCT, but the cytology of pancreatic juice at ERCP was class II. Abdominal dynamic CT showed a 2×1cm lesion of the pancreatic head and body located at the MPD stenosis showing a low-density area at the early phase and slight enhancement at the late phase, suggesting coexistence of pancreatic cancer. PET/CT showed no significant accumulation in the MPD stenosis and slight accumulation in the SCT, but maximum standardized uptake—early uptake of 2.93 and late uptake of 2.21—was benign. We conducted pancreatoduodenectomy. Pathological findings showed serous cystic adenoma coexisting with 1.5cm pancreatic carcinoma at the same place showed in the abdominal CT. To our knowledge, this case is very rare and the first reported in Japan.

**Key words** : serous cystic adenoma, pancreatic carcinoma, PET/CT

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 41 : 1821—1826, 2008]

**Reprint requests** : Sadanobu Izumi Department of Surgery, Kagawa Prefectural Central Hospital  
5-4-16 Bancho, Takamatsu, 760-8557 JAPAN

**Accepted** : April 23, 2008