

症例報告

## CA19-9 産生巨大脾嚢胞破裂の1例

鶴岡市立荘内病院外科

小林 和明 鈴木 聡 三科 武  
大滝 雅博 二瓶 幸栄 松原 要一

まれな CA19-9 産生巨大脾嚢胞の自然破裂発症例を経験したので報告する。症例は 39 歳の女性で、左側腹部痛を主訴に当院救急外来を受診した。腹部 CT にて脾臓をほぼ占居するような 15×9cm 大の巨大な脾嚢胞と脾臓周囲に腹水を認めた。脾嚢胞破裂による腹膜炎の診断で緊急脾臓摘出術を施行した。脾嚢胞内面は白色調であり不規則、網目状の梁形成を認めた。術前血清 CA19-9 は 7,490U/ml と高値を示した。嚢胞内容液は茶褐色調で CA19-9 が 711,000U/ml と異常高値を示し腹水の性状と同じであった。病理組織学的診断は上皮性嚢胞であり、嚢胞内面の大半は重層扁平上皮で覆われていた。免疫組織染色検査にて脾嚢胞被覆上皮は CA19-9 陽性であった。手術後血清 CA19-9 値は速やかに正常化した。各種検査を施行したが、異常所見を認めなかった。

### はじめに

画像診断の進歩により脾嚢胞の報告は多数存在するが、CA19-9 産生脾嚢胞の報告はいまだ少なくまれな疾患であり、石曾根ら<sup>1)</sup>の報告では約 50 例としている。さらに、CA19-9 産生脾嚢胞の破裂の報告は検索しえた範囲では自験例を含めて 4 例を数えるのみであり、文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

患者：39 歳，女性

主訴：左側腹部痛

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：2007 年 5 月突然の左側腹部痛で発症し、次第に症状が増強したため近医を受診した。腹部超音波検査にて脾臓に 12×9cm 大の嚢胞と腹水を認め、同日当院救急外来を紹介受診した。腹部 CT にて脾嚢胞の破裂の疑いで外科入院となった。

入院時現症：身長 158cm，体重 55kg，体温 37.0

度，血圧 140/75mmHg，脈拍 80 回/分。眼瞼結膜に貧血はなく，眼球結膜に黄疸を認めなかった。腹部は平坦で左側腹部に強い圧痛を認め反跳痛を認めた。同部位に腫瘍は触知しなかった。

入院時血液生化学検査所見：WBC 12,100/mm<sup>3</sup>，RBC 444×10<sup>4</sup>/mm<sup>3</sup>，Hb 13.6g/dl，Plt 24.7×10<sup>4</sup>/mm<sup>3</sup>と貧血はなく白血球の増加を認めた。生化学検査は CRP が 2.3mg/dl と軽度上昇を認めたが他に異常は認めなかった。腫瘍マーカーは CEA 7.6ng/ml，CA19-9 7,490U/ml と上昇を認めた。

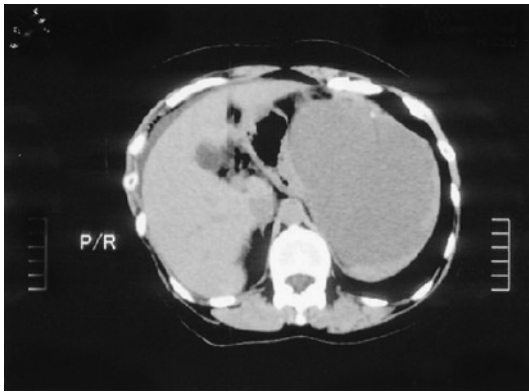
腹部骨盤部 CT 所見：脾臓をほぼ占居する 15×9cm 大の球形で内部均一な低吸収域の嚢胞を認めた。周囲との境界は明瞭であった。明らかなリンパ節腫大はなく，腹腔内遊離ガス像は認めなかった。脾臓周囲から肝表面にかけて多量の腹水を認め脾嚢胞破裂が考えられた (Fig. 1)。

以上より，脾嚢胞破裂による腹膜炎の診断で緊急手術を施行した。

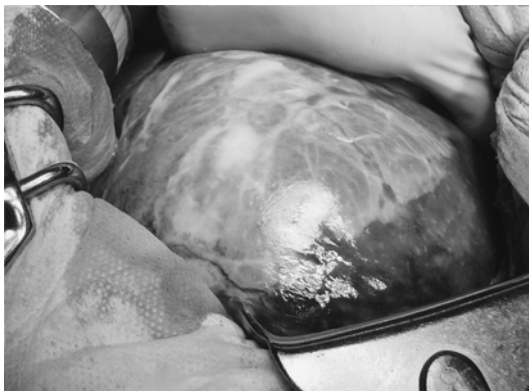
手術所見：上腹部正中切開にて開腹した。腹腔内には茶褐色の腹水を認めた。脾臓は周囲との癒着を認めなかった (Fig. 2)。約 500cc の腹水を吸引し腹腔内を洗浄した後，脾臓摘出術を施行した。

<2008 年 5 月 21 日受理>別刷請求先：小林 和明  
〒951-8510 新潟市中央区旭町通 1-757 新潟大学  
大学院医歯学総合研究科消化器・一般外科学分野

**Fig. 1** Abdominal CT showed a cystic tumor (15cm in diameter) in the spleen. The ascites around the spleen was appeared.



**Fig. 2** There was a huge cystic tumor occupying almost the spleen. The brown ascites was similar to cystic fluid.



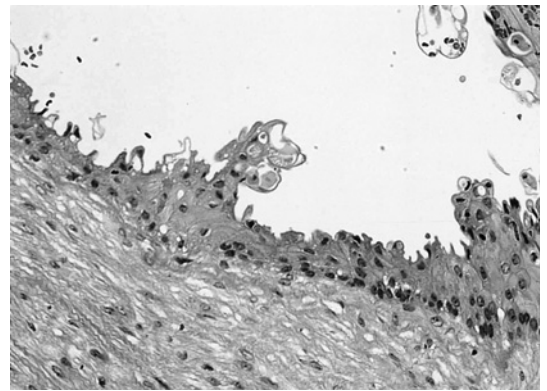
摘出標本検査所見：脾臓内に大きな嚢胞を認めた。脾嚢胞の大きさは15×9×5cm、脾臓重量は980g、嚢胞内容液は700mlで茶褐色状であり肉眼的には腹水と同じ性状のものと思われた。嚢胞内容液中のCEAは1,737ng/ml、CA19-9は711,000 U/mlと異常高値を示した。嚢胞内面は不規則で網目状に梁形成を認めた。白色調で薄い部位は透けて見え、黄色が混じった部位も見られた (Fig. 3)。

病理組織学的診断所見：嚢胞壁では膠原繊維が増加し、一部に弾性繊維の増生を認めた。嚢胞内面では多くの部分で上皮が存在したが、上皮が剥離消失した部位が存在した。嚢胞壁の大部分は

**Fig. 3** The inner lumen of the cyst was white, irregular, and liked mesh. It was covered with stratified squamous epithelium.



**Fig. 4** Microscopic view a stratified squamous epithelium on the inner surface of the cystic wall (HE×400).



1~2層から数層に及ぶ重層扁平上皮で覆われていたが一部細胞質が淡明で円柱状~立方状の細胞 (hobnail 状) を認める部分もあった (Fig. 4)。細胞質が淡明な細胞の一部はPAS染色やAlcian Blue染色で陽性であった。CA19-9、CEAによる免疫染色では嚢胞被覆上皮は陽性であった (Fig. 5)。以上より、CA19-9産生性の脾臓上皮性嚢胞の診断となった。

術後腫瘍マーカーの推移：血清CA19-9、CEA値は脾臓摘出術直後より低下し、術後1か月には正常範囲内となった (Table 1)。

術後経過：経過は良好で、術後8病日に退院し、当科外来にて経過観察中である。退院後、上部お

Fig. 5 The epithelial cell of the cyst wall showed immunoreactivity to CA19-9.

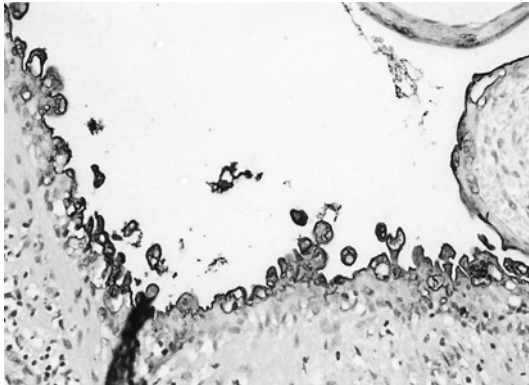


Table 1 After surgery, serum CA19-9 returned to normal range

	Admission	May	June	September
CA19-9 (U/ml)	7,490	993	19.3	10.7
CEA (U/ml)	7.6	0.9	0.8	1.1

および下部消化管内視鏡検査を施行したが異常所見は認めなかった。血清腫瘍マーカーの上昇は本病態による変化と考えられた。

### 考 察

脾嚢胞は1829年にAndral<sup>2)</sup>が剖検例を世界で初めて報告した。本邦では1890年に有田<sup>3)</sup>が報告している。その後、現在までに600例以上の報告例があり近年の画像診断技術の進歩に伴いその数は増加している。McClureら<sup>4)</sup>の分類によれば細胞配列の有無により真性嚢胞と仮性嚢胞に分類される。細胞配列は退行性変化により消失することもあれば2次的なlining cellの発生もありえるためその鑑別は必ずしも容易ではない。真性嚢胞はさらに上皮性と内皮性に分類される。上皮性は類皮嚢胞と類上皮嚢胞、内皮性はリンパ管腫、血管腫、漿液性嚢胞に分類される。本例は一見類上皮嚢胞様であるが角化物がほとんどないこと、全面が扁平上皮で覆われているわけではないこと、淡明な細胞や円柱状の細胞を認める部位も存在することから上皮性嚢胞と考えられる。

CA19-9は1978年にKolowskiらにより発見さ

れた糖鎖抗原で膵および胆道系悪性腫瘍での陽性率が高いが良性腫瘍でも上昇する。CA19-9産生脾嚢胞の報告例は本邦では約50例と比較的まれな疾患と言える。

藤田ら<sup>5)</sup>のCA19-9産生脾嚢胞の26例の報告では患者は9歳から66歳までで平均年齢は28歳、男女比は1:2で若い女性に多い傾向がある。脾嚢胞の中には嚢胞壁より発生する悪性腫瘍合併例も欧米を含めて4例認め、嚢胞壁内の異所性膵の存在も指摘された。大きさに関しては石曾根ら<sup>1)</sup>の脾嚢胞の最大径28cmの報告が本邦最大であり、大きさを経時的に観察できた報告は少ない。

血清CA19-9が高値になる機序としては、一般的には外傷を契機に嚢胞が発生し中皮細胞が迷入、扁平上皮化生を起し嚢胞内で分泌されたCA19-9が徐々に蓄積、濃縮され、ある内圧以上になると血中に逸脱し高値を呈すると考えられている<sup>6)</sup>。嚢胞穿刺後に内圧が減少すると血清CA19-9が正常化したとの報告もある<sup>7)</sup>。CEA産生に関しては、嚢胞内でのみCEAが異常上昇を認めている症例が多く、奈賀ら<sup>8)</sup>は嚢胞内のCEAを血中に逸脱および漏出させるには、さらに高い嚢胞内圧の必要性を示唆している。

自験例を含めCA19-9産生脾嚢胞の報告例28例中、嚢胞壁上皮の免疫染色で22例がCA19-9陽性例であった。脾臓摘出後、血清CA19-9は全例正常化していること、および嚢胞壁の免疫染色によりCA19-9が陽性となることから、CA19-9は嚢胞被覆上皮で産生されていると思われた。

嚢胞破裂を伴った症例はさらにまれであり、我々が医学中央雑誌で、「脾嚢胞」「CA19-9」「破裂」をキーワードとして1983年から2008年2月までの期間で検索しえた範囲では、自験例を含めて4例の報告を認めるのみである<sup>9)~11)</sup>。3例<sup>9)10)</sup>は自然破裂で1例<sup>10)</sup>は外傷性破裂であった。全例が脾臓摘出術を施行している(Table 2)。脾嚢胞自然破裂後の腹膜炎に対し保存的治療を行った後に手術を施行している伊澤ら<sup>9)</sup>の報告もある。本症例は外傷の既往なく自然破裂による腹膜炎にて緊急手術を施行した。肉眼的には明らかな嚢胞壁の穿孔は認めなかったが、摘出標本では嚢胞壁の上皮の剥離、

Table 2 Four cases of the rupture of CA19-9 producing splenic cyst in Japanese literature

Case	Author	Year	Age	Sex	Size	Serum CA19-9 (U/ml)	Intra cystic fluid CA19-9 (U/ml)	Treatment	Pathology	Immunoreactivity to CA19-9 (U/ml)	Opportunity
1	Izawa <sup>9)</sup>	2000	17	F	9.5	4,887	> 40,000	Splenectomy	epidermoid cyst	Unknown	Spontaneous
2	Tamura <sup>10)</sup>	2003	33	F	10	8,400	> 10,000	Splenectomy	epithelial cyst	Unknown	Spontaneous
3	Yamamoto <sup>11)</sup>	2004	15	M	10	214.5	> 5,000	Splenectomy	epidermoid cyst	Positive	Trauma
4	Present		39	F	12	7,490	711,000	Splenectomy	epithelial cyst	Positive	Spontaneous

消失した部位を認めており、嚢胞内圧が異常に上昇し同部から嚢胞内容液が漏出してきたものと推

測される。本症例の嚢胞破裂の原因としては、明らかな腹部打撲の既往がないこと、摘出標本の詳細な検討において感染などの炎症所見を認めていないことより、以前より存在していた脾嚢胞の内圧が徐々に上昇した結果、嚢胞壁が破綻した自然破裂であったと思われる。手術適応については嚢胞の長径が10cm以上を適応としている報告や長径7cm以上で破裂の危険性が高いとしている報告があるが<sup>12)13)</sup>、腹痛や腹部膨満感などの症状が出現した時点または破裂の危険性が高いと考えられた症例を適応としている報告もある<sup>14)</sup>。自験例を含めたCA19-9産生脾嚢胞破裂例4例の検討において嚢胞の長径が約10cmを越えると嚢胞破裂の危険性が高まると考えられ、長径が10cmを越える前に治療を行うことが望ましいと思われる。また、嚢胞内出血と感染を呈し脾臓摘出術を施行した症例<sup>15)</sup>も報告されており、脾嚢胞の破裂のみでなく、出血、感染も手術適応の一要素と思われる。

治療法には手術療法として脾臓摘出術、脾臓部分切除術、嚢胞開窓術などがあり、保存的療法として嚢胞穿刺<sup>7)</sup>、薬物注入療法<sup>16)17)</sup>などがあげられる。嚢胞の経年的増大、嚢胞内出血、感染の危険性を勘案すれば、脾嚢胞の診断が確定すれば手術を考慮すべきと思われる。最近では、低侵襲性、美容面を考慮し腹腔鏡下脾臓摘出術<sup>18)</sup>や腹腔鏡下嚢胞切除術<sup>19)</sup>も施行されている。本症例は嚢胞が脾門部を含めた脾臓のほぼ全体を占居しており、脾臓温存は不可能と判断し脾臓摘出術を選択した。悪性腫瘍も否定できないため脾臓摘出術を施行したとする報告も散見されるが、嚢胞穿刺細胞診を行い悪性所見のないことを確認後脾臓温存術を施行しえた報告<sup>18)</sup>も認める。しかし、脾臓摘出後の重症感染症の発症頻度が成人、小児で増加するとの報告<sup>20)21)</sup>も見られることから、脾臓温存術が可能であれば積極的に温存を考慮し術後の免疫能の維持に努める必要があると思われる。

## 文 献

- 1) 石曾根聡, 千須和寿直, 清水文彰ほか: CA19-9産生巨大脾嚢胞の1例. 日臨外会誌 66: 2797-2801, 2005
- 2) Andral G: *Precis d'Anatomie pathologique*. vol2. Gabon, Paris, 1829, p432

- 3) 有田久松：脾臓血嚢腫. 順天堂医事研会誌 **89** : 905—911, 1890
- 4) McClure RD, Altmeiter WA : Cyst of the spleen. *Ann Surg* **116** : 98—102, 1942
- 5) 藤田洋一, 谷 真至, 寺澤 宏ほか：CA19-9 産生脾嚢胞の1例. 日消外会誌 **40** : 1700—1705, 2007
- 6) 島多勝夫, 桐山誠一, 山下芳朗ほか：血清 CA19-9 高値を呈した脾類表皮嚢胞の1例. 日消外会誌 **26** : 942—946, 1993
- 7) 山田拓司, 間下信昭, 大島充一ほか：血清 CA19-9 が高値を示した脾嚢胞の1例. 腹部画像診断 **14** : 666—671, 1994
- 8) 奈賀卓司, 山代 寛, 池口正英ほか：CA19-9 産生脾嚢胞の1例. 日臨外会誌 **59** : 1211—1214, 2004
- 9) 伊澤 光, 金 成泰, 西原政好ほか：嚢腫破裂により腫瘍マーカーが高値を示した脾類上皮嚢腫の1例. 日消外会誌 **33** : 1696—1700, 2000
- 10) 田村 光, 高塩すすむ, 金井信行ほか：経過中腫瘍マーカーの上昇から破裂が疑われた脾嚢胞の1例. 日臨外会誌 **64** : 2865—2868, 2003
- 11) 山本寛斉, 宇高徹総, 徳毛誠樹ほか：外傷性破裂を契機に発見され, 血清 CA19-9 及び CA125 高値を呈した小児脾類表皮嚢胞の1例. 日臨外会誌 **65** : 204—208, 2004
- 12) 大内慎一郎, 瀬戸泰士, 花岡農夫ほか：脾類上皮嚢胞の1例. 日臨外医会誌 **50** : 1361—1364, 1995
- 13) Musy PA, Roche B, Belli D et al : Splenic cysts in pediatric patients—a report on 8 cases and review of the literature. *Eur J Pediatr Surg* **2** : 137—140, 1992
- 14) Robbins FG, Yellin AE, Lingua RW et al : Splenic epidermoid cysts. *Ann Surg* **187** : 231—235, 1978
- 15) 山口 隆：外傷性嚢腫内血腫と感染を伴った脾 epidermoid cyst の1例. 日臨外医会誌 **44** : 1357—1365, 1983
- 16) Akhan O, Baykan Z, Oguzkurt L et al : Percutaneous treatment of a congenital splenic cyst with alcohol : a new therapeutic approach. *Eur Radiol* **7** : 1067—1070, 1997
- 17) 徳原克治, 濱田吉則, 渡邊健太郎ほか：巨大腸間膜リンパ管腫に対し腹腔鏡補助下嚢腫亜全摘術と硬化療法を併用した1例. 日小児外会誌 **39** : 970—975, 2003
- 18) 松岡功治, 吉田 晋, 山本光太郎ほか：CA19-9 産生性脾嚢胞の1例. 日臨外会誌 **61** : 2482—2487, 2000
- 19) 森洋一郎, 桑原義之, 篠田憲幸ほか：Laparoscopic dome resection が奏効した CA19-9 産生脾嚢胞の1例. 日臨外会誌 **69** : 171—174, 2008
- 20) Buntain WL, Lynn HB : Splenorrhapy ; Changing concept for the traumatized spleen. *Surgery* **86** : 748—760, 1979
- 21) Singer DB : Postsplenectomy sepsis. *Perspect Pediatr Pathol* **1** : 285—311, 1973

### **A Case of the Rupture of CA19-9 Producing Huge Splenic Cyst**

Kazuaki Kobayashi, Satoshi Suzuki, Takeshi Mishina,  
Masahiro Ootaki, Kouei Nihei and Youichi Matsubara  
Department of Surgery, Tsuruoka Municipal Shonai Hospital

We report a case of the rupture of a huge CA19-9 producing splenic cyst. A 39-year-old woman admitted for left side abdominal pain, was found in computed tomography to have a 15 × 9cm-splenic cyst, occupying almost of the spleen surrounded by ascites. She also had high serum CA19-9 of 7,490U/ml . We suspected peritonitis due to splenic cyst rupture, and conducted splenectomy. The inner surface of the splenic cyst was white, irregular, and mesh-like, covered with stratified squamous epithelium. The cystic fluid and ascites were brown. CA19-9 in cystic fluid was high at 711,000U/ml. The cyst was found histologically to be epithelial and immunohistochemical staining was positive for CA19-9 in cystic fluid. After surgery, serum CA19-9 returned to the normal range. Upper and lower gastrointestinal endoscopy showed no further abnormality.

**Key words** : splenic cyst, CA19-9, rupture

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 41 : 2058—2063, 2008]

**Reprint requests** : Kazuaki Kobayashi Division of Digestive and General Surgery, Niigata University Graduate School of Medical and Dental Sciences  
1-757 Asahimachi-dori, Niigata, 951-8510 JAPAN

**Accepted** : May 21, 2008