

症例報告

膵臓に発生した dermoid cyst の 1 例

富士市立中央病院外科, 同 臨床検査科¹⁾, 東京慈恵会医科大学外科学講座消化器外科²⁾

恩田 真二 吉田 清哉 梶本 徹也
遠藤 泰彦¹⁾ 矢永 勝彦²⁾

症例は 65 歳の男性で, 虚血性大腸炎のため入院中, 腹部 CT で膵尾部に 4.5×3.5cm の嚢胞性腫瘍を指摘された。膵管の拡張は伴わず, 膵管内乳頭粘液性腫瘍 (intraductal papillary mucinous neoplasm ; 以下, IPMN) の分枝型と診断して経過を観察した。当初は無症状であったが, 次第に背部痛が出現し, 2 か月後の腹部 CT で腫瘍は増大した。血清 CA19-9 が高値でもあることから, 悪性腫瘍を否定できず, 脾合併膵体尾部切除術を施行した。病理組織学的検査では, 膵臓に発生した dermoid cyst と診断された。膵臓の本疾患の報告は自験例を含め我々が検索しえた範囲で 21 例と非常にまれである。卵巣の dermoid cyst では悪性化が報告されており, 注意深い経過観察が必要である。

はじめに

膵嚢胞性腫瘍には, 手術適応のある粘液性嚢胞性腫瘍 (mucinous cystic neoplasm ; 以下, MCN) や主膵管型膵管内乳頭粘液性腫瘍 (intraductal papillary mucinous neoplasm ; 以下, IPMN), 経過観察が可能な仮性嚢胞や分枝型 IPMN が存在する。今回, 我々は腹部 CT 検査で偶然に発見した膵臓に発生した dermoid cyst の 1 例を経験した。膵 dermoid cyst は 1918 年に Kerr¹⁾ が報告して以来, 我々が検索しえた範囲で海外では英語の文献で 17 例^{2)~17)}, 本邦では本症例を含め 4 例¹⁸⁾¹⁹⁾ の報告がみられるのみであり, 非常にまれな疾患と考えられる。

症 例

患者 : 65 歳, 男性

主訴 : なし

既往歴 : 高血圧, 心房細動, 洞不全症候群に対してペースメーカー管理中。

現病歴 : 嘔吐, 下血の加療目的で入院し, 下部消化管内視鏡検査で虚血性大腸炎と診断された。症状は軽快したが, 腹部 CT で膵尾部に 4.5×3.5

cm の嚢胞性腫瘍を認めた。膵管の拡張を伴わず, 分枝型 IPMN の診断で経過観察していた。当初は無症状であったが, 次第に背部痛が出現し, 診断から 2 か月後の腹部 CT で腫瘍は増大した。血清 CA19-9 が高値でもあることから, 悪性腫瘍を否定できず手術を施行した。

現症 : 背部痛を訴えたが, 腹部に異常所見を認めず, 腹部腫瘍を触知しなかった。

血液検査所見 : 炎症所見はなく, 血清アミラーゼは正常値。腫瘍マーカーは CEA および DUPAN-2 は正常値であったが, CA19-9 が 335.5 U/ml と高値であった。CA19-9 値の推移は, 1 か月後 293.4U/ml, 2 か月後 337.0U/ml と高値であり, 変化を認めなかった。

腹部 US 所見 : 消化管ガスの影響で描出不良であったが, 膵尾部に嚢胞性腫瘍を認めた。膵管の拡張は認めなかった (Fig. 1)。

腹部造影 CT 所見 : 初診時, 膵尾部に 4.5×3.5 cm の多房性嚢胞性腫瘍を認めた (Fig. 2A)。2 か月後の CT では, 腫瘍は 5.4×3.5cm に増大していた (Fig. 2B)。

ペースメーカーが留置されているため, MRI は施行しなかった。

手術所見 : 網嚢腔を開放すると膵尾部の上縁に

<2009 年 9 月 16 日受理> 別刷請求先 : 恩田 真二
〒417-8567 富士市高島町 50 富士市立中央病院外科

Fig. 1 Abdominal US demonstrated a hypoechoic mass of the pancreatic tail without the dilatation of the pancreatic duct.

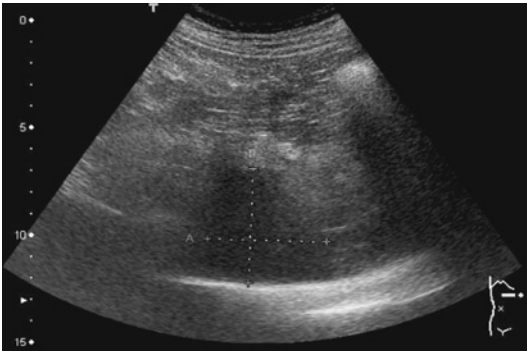
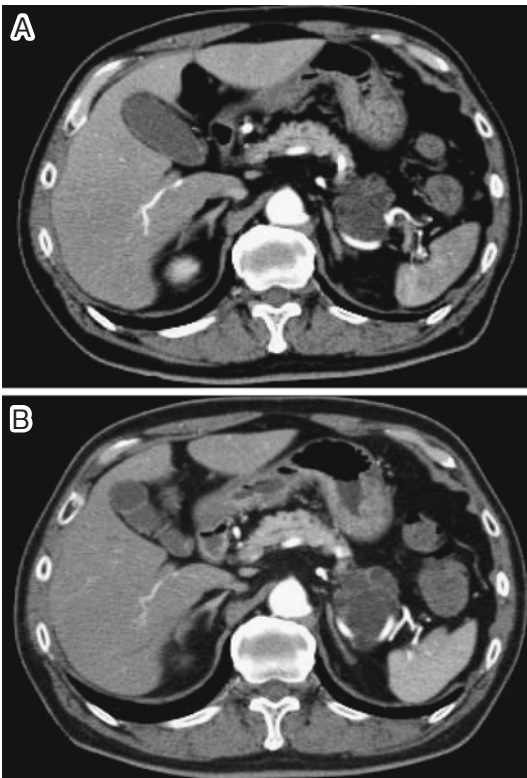
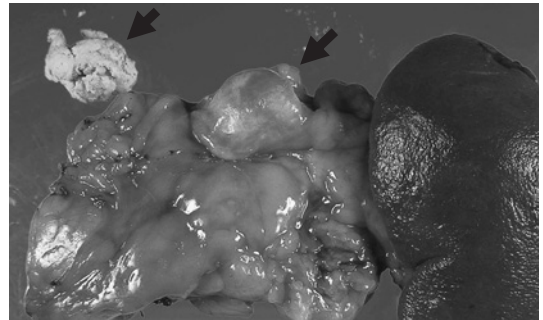


Fig. 2 A : Abdominal CT exhibited a multilocular cystic mass arising from the tail of the pancreas 4.5×3.5cm. B : Two month later, the cystic mass grew to 5.4×3.5cm in size.



約4cmの腫瘍を認め、腫瘍は胃と線維性に癒着していた。他臓器、腹膜には異常を認めなかった。癒着剥離の際に嚢胞壁を損傷し、灰白色でケラチ

Fig. 3 Surgical specimen. The cyst was filled with finely granular, grayish white, keratinous, and sebaceous components (arrow).



ン様内容物の漏出を認めた。術中迅速病理組織学的診断では悪性所見はみられなかったが、悪性腫瘍の完全な否定は困難であり、脾合併膵体尾部切除術を施行した。切除検体は、膵尾部に嚢胞性病変を認め、灰白色で顆粒状の皮脂腺を含んだケラチン様物質の脱出を認めた (Fig. 3 矢印)。

病理組織学的検査所見：嚢胞性腫瘍の壁はリンパ性組織、皮脂腺を伴う重層扁平上皮により被覆されていた。嚢胞内には変性したケラチン様物質が貯留しており、膵臓に発生した dermoid cyst と診断した。悪性所見は認めなかった。免疫組織化学的検索で、皮脂腺に CA19-9 濃染を認めた。(Fig. 4A~D)。

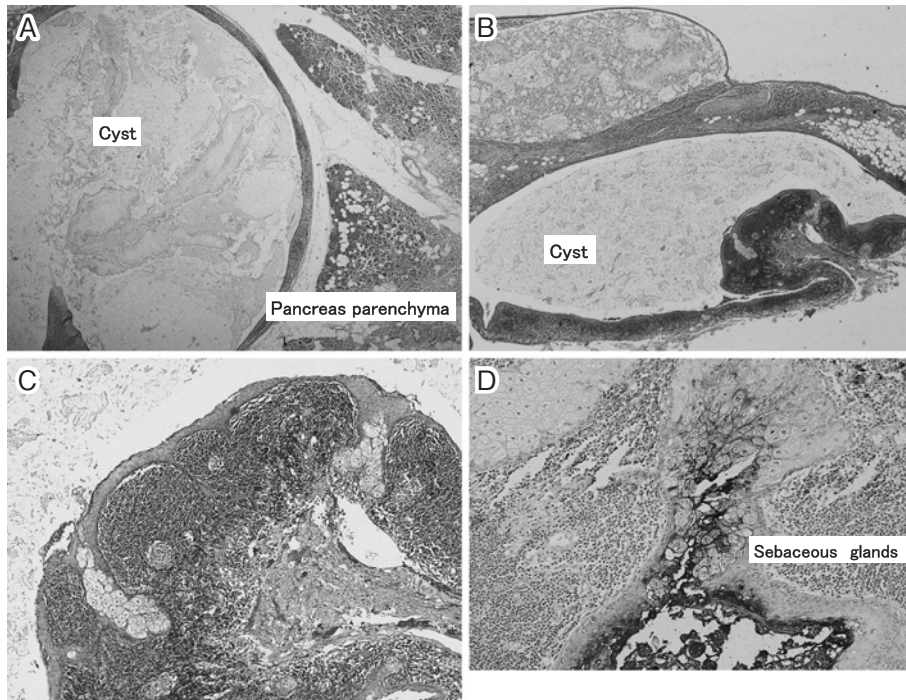
術後経過：術後膵液漏を認めたが、経皮的ドレナージにより改善した。CA19-9は術後に正常化した。以後、1年4か月の間再発を認めず外来経過観察中である。

考 察

奇形腫は胚細胞性腫瘍であり、3胚葉成分から構成される。外胚葉性の皮膚、毛髪、歯、皮脂腺、神経組織、中胚葉性の骨、軟骨、内胚葉性の気管支、消化管、甲状腺などの多彩な組織所見が無秩序に出現する。

Dermoid cyst は成熟嚢胞性奇形腫に分類される良性腫瘍である。皮膚付属器を含む表皮に被覆され、嚢胞内容として皮脂、角化物、毛髪などが含まれる。Epidermoid cyst は皮膚付属器成分を含まない点で dermoid cyst と区別され、膵臓に発

Fig. 4 A ~ C: Histology of the resected specimen. The cyst wall was lined by squamous epithelium with lymphoid tissue and sebaceous glands. The lumen of the cyst was filled with keratin material. No malignant cells were seen in the cyst wall (HE stain, A: $\times 10$, B: $\times 20$, C: $\times 40$). D: Immunohistochemical study revealed positive cells for CA19-9 in the sebaceous gland (CA19-9 stain, $\times 100$).



生するものは膵内副脾由来である。

Dermoid cyst は主に卵巣に発生し、その他、精巣、頭蓋、脳、縦隔、大網、後腹膜、膀胱、仙尾骨部などに発生するが、膵臓での発生は極めてまれである。

PubMedと1983年から2009年1月までの医学中央雑誌で、それぞれ「膵 dermoid cyst」、「膵奇形腫」のキーワードにて検索したところ、膵臓に発生した dermoid cyst は、1918年に Kerr が報告して以来、海外では英語の文献で17例が報告され、本邦では本症例が4例目の報告であった (Table 1)。男女比はほぼ同数で、年齢は2~74歳と広範囲にわたり、症状は腹痛、背部痛、嘔気・嘔吐、体重減少、発熱などが多いが、本症例のように画像検査にて偶然に発見される場合もある⁸⁾¹²⁾¹⁷⁾¹⁹⁾。また、腹部診察上、腫瘍を触知するものが多い。発生部位は膵臓頭部、体部、尾部のいずれの部位

からも発生する。

診断は通常の膵腫瘍と同様に、US、CT、MRI、超音波内視鏡 (endoscopic ultrasonography; 以下、EUS)、EUSガイド下穿刺吸引法 (EUS guided fine needle aspiration; 以下、EUS-FNA) などが有用である。Dermoid cyst の鑑別疾患は、MCN、IPMN、仮性嚢胞、リンパ上皮性嚢胞や epidermoid cyst などが挙げられる。USでは嚢胞内の充実成分が描出され、CTでは嚢胞内部の石灰化成分や脂肪などが描出される。MRIにより、嚢胞内構造や周囲組織との関係が明瞭化される。超常磁性酸化鉄 (superparamagnetic iron oxide; 以下、SPIO) 造影剤は肝特異性であるが、膵臓の網内系細胞にも取り込まれるため、SPIO造影MRIでは副脾も膵臓と同様の造影パターンを示す。このため、epidermoid cyst の発生母体である膵内副脾の存在診断に有用である²⁰⁾。本症例は、ペースメー

Table 1 Reported cases of dermoid cyst of the pancreas in the English and Japanese literature

No	Author	Year	Age/Sex	Symptom	Location	Treatment
1	Kerr ¹⁾	1918	55/F	Epigastric swelling, indigestion	Head	Drainage, marsupialization, reoperated : excision, drainage
2	Dennis ²⁾	1923	40/M	Back pain	Body	Marsupialization
3	Masson ³⁾	1929	33/F	Back pain	Tail	Excision
4	Decourcy ⁴⁾	1943	2/F	Vomiting	Body	Excision
5	Assawamatiyanont ⁵⁾	1977	11/F	Non	Body	Excision
6	Lazaro ⁶⁾	1984	21/M	Nausea, constipation	Body	Biopsy, drainage, reoperated : excision
7	Ishida ¹⁸⁾	1987	44/M	Abdominal pain	Tail	Cystectomy
8	Mester ⁷⁾	1990	25/F	Abdominal pain	Head	Excision
9	Vermeulen ⁸⁾	1990	46/M	Non	Body	Left pancreatectomy
10	Markovsky ⁹⁾	1993	53/F	Abdominal pain	Body	Excision
11	Jacobs ¹⁰⁾	1993	57/F	Abdominal pain, Weight loss	Body	Excision
12	Iacono ¹¹⁾	1993	26/F	Abdominal pain, fever, Weight loss	Head	Pancreatoduodenectomy
13	Kraimps ¹²⁾	1993	42/M	Non	Head	Pancreatoduodenectomy
14	Fernandez-Cebrian ¹³⁾	1998	74/M	Back pain	Body	Distal splenopancreatectomy
15	Yu ¹⁴⁾	2003	2/M	Non	Head-body	Excision
16	Salimi ¹⁵⁾	2004	16/M	Progressive icterus, Weight loss	Head-body	Excision, choledochoduodenostomy
17	Seki ¹⁹⁾	2005	57/M	Non	Body	Excision
18	Seki ¹⁹⁾	2005	60/M	Non	Body	Middle pancreatectomy
19	Koomalsingh ¹⁶⁾	2006	52/M	Abdominal pain	Tail	Simple cystectomy
20	Tucci ¹⁷⁾	2007	64/M	Non	Tail	Left pancreatectomy
21	Ours		65/M	Back pain	Tail	Distal splenopancreatectomy

カーが留置されており，MRIは施行できなかった。また，最近EUSは膵腫瘍の描出に有用であり頻用されている。EUS-FNAは，膵腫瘍の組織診断および嚢胞内容物の生化学検査，腫瘍マーカーなどの測定も可能であり，開腹生検より安全性，侵襲性，経済性において優れている。経皮的生検では，悪性腫瘍の穿刺ルート播種のリスクがあるが，EUS-FNAは低リスクである。これまでの報告で，膵臓に発生したdermoid cystが術前診断可能であった症例が1例あり，CTガイド下のFNAで診断された⁹⁾。本症例では施行しなかったが有用な可能性が高い。

腫瘍マーカーに関しては，本症例で血清CA19-9が高値を示した。CA19-9は正常の胆管上皮，気管支腺などの正常組織や単純性肝嚢胞などの嚢胞性疾患の壁にも存在し，奇形腫を構成する細胞や奇形腫内に含まれる組織の種類によって規定されると考えられる。本症例は皮脂腺にCA19-9染色が陽性であり，腫瘍摘出後に血清CA19-9

が正常化したことから，腫瘍自体がCA19-9を産生していたと考えられる。卵巣のdermoid cystのうちCA19-9が高値となるものは43%と報告されており，腫瘍マーカー値だけでは良悪性の鑑別が困難であるが，悪性転化率が約2%存在し，悪性転化に伴って，血清CEA，CA19-9，SCC，CA125が上昇した症例も報告されているため注意が必要である^{21)~23)}。膵dermoid cystの切除症例の術後再発はこれまで報告がないが，悪性転化の可能性も否定できないため，術後の経過観察が必要であろう。

Dermoid cystの治療に関して過去の報告で，ドレナージ術が行われた5例中2例に再手術が施行され¹⁶⁾，他の1例は難治性嚢孔を形成した²⁾。本症例のように悪性腫瘍との鑑別が困難である場合や有症状例に対しては，ドレナージではなく切除することが望ましいと考える。

文 献

- 1) Kerr AA : Cysts and pseudocysts of the pan-

- creas. *Surg Gynecol Obstet* **27** : 40—44, 1918
- 2) Dennis WA : Dermoid cyst of the pancreas. *Surg Clin North Am* **3** : 1319—1322, 1923
 - 3) Masson JC, Caylor HD : Dermoid cyst of the pancreas. *Surg Clin North Am* **9** : 837—839, 1929
 - 4) Decourcy JL : Dermoid cyst of pancreas. *Ann Surg* **118** : 394—395, 1943
 - 5) Assawamatyanont S, King AD : Dermoid cyst of the pancreas. *Am Surg* **43** : 503—504, 1977
 - 6) Lazaro da Silva A, Moreno Junior M : Surgery of pancreatic dermoid cyst with ligation of superior mesenteric vein. *Arq Gastroenterol* **21** : 183—186, 1984
 - 7) Mester M, Trajber HJ, Compton CC et al : Cystic teratomas of the pancreas. *Arch Surg* **125** : 1215—1218, 1990
 - 8) Vermeulen BJ, Widgren S, Gur V et al : Dermoid cyst of the pancreas : case report and review of the literature. *Gastroenterol Clin Biol* **14** : 1023—1025, 1990
 - 9) Markovsky V, Russin VL : Fine-needle aspiration of dermoid cyst of the pancreas : a case report. *Diagn Cytopathol* **9** : 66—69, 1993
 - 10) Jacobs JE, Dinsmore BJ : Mature cystic teratoma of the pancreas : sonographic and CT findings. *Am J Roentgenol* **160** : 523—524, 1993
 - 11) Iacono C, Zamboni G, Di Marcello R et al : Dermoid cyst of the head of the pancreas area. *Int J Pancreatol* **14** : 269—273, 1993
 - 12) Kraimps JL, Zins J, Levillain P et al : Dermoid cyst of the pancreas. *Eur J Surg* **159** : 437—439, 1993
 - 13) Fernandez-Cebrian JM, Carda P, Morales V et al : Dermoid cyst of the pancreas : a rare cystic neoplasm. *Hepatogastroenterology* **45** : 1874—1876, 1998
 - 14) Yu CW, Liu KL, Lin WC et al : Mature cystic teratoma of pancreas in a child. *Pediatr Radiol* **33** : 266—268, 2003
 - 15) Salimi J, Karbakhsh M, Dolatshahi S et al : Cystic teratoma of the pancreas : a case report. *Ann Saudi Med* **24** : 206—209, 2004
 - 16) Koomalsingh KJ, Fazylov R, Chorost MI et al : Cystic teratoma of the pancreas : presentation, evaluation and management. *JOP* **7** : 643—646, 2006
 - 17) Tucci G, Marco GM, Casimiro N et al : Dermoid cyst of the pancreas : presentation and management. *World J Surg Oncol* **5** : 85, 2007
 - 18) 石田 武, 辻本嘉助, 浅津民夫ほか : 脾皮様嚢腫の1例. *消外* **10** : 1869—1872, 1987
 - 19) Seki M, Ninomiya E, Aruga A et al : Image-diagnostic features of mature cystic teratomas of the pancreas : report on two cases difficult to diagnose preoperatively. *J Hepatobiliary Pancreat Surg* **12** : 336—340, 2005
 - 20) 竹下 徹, 館野 円, 古井 滋ほか : MRIによる膵内副脾の診断—SPIO造影剤MRIの有用性を含めて—. *臨消内科* **17** : 771—776, 2002
 - 21) 三崎三郎, 北 陸平, 宮本新太郎 : 成人にみられた後腹膜悪性奇形腫の1例. *臨外* **38** : 1089—1093, 1983
 - 22) Hirai K, Ishiko O, Itoh F et al : Clinical evaluation of mature teratomas containing malignant elements. *Oncol Rep* **7** : 655—657, 2000
 - 23) Sumi T, Ishiko O, Maeda K et al : Adenocarcinoma arising from respiratory ciliated epithelium in mature ovarian cystic teratoma. *Arch Gynecol Obstet* **267** : 107—109, 2002

A Case of Dermoid Cyst of the Pancreas

Shinji Onda, Seiya Yoshida, Tetsuya Kajimoto,
Yasuhiko Endo¹⁾ and Katsuhiko Yanaga²⁾

Department of Surgery and Department of Pathology and Laboratory Medicine¹⁾, Fuji City Central Hospital
Department of Surgery, The Jikei University School of Medicine²⁾

A 65-year-old man was found in computed tomography (CT) during hospitalization for ischemic colitis to have a 4.5 × 3.5cm cystic mass arising from the pancreatic tail. With the absence of pancreatic duct dilation, the cystic mass was diagnosed as a branch duct intraductal papillary mucinous neoplasm (IPMN), and the man was followed up as an outpatient. After he reported back pain, a workup CT two months later showed that the IPMN had grown and serum CA19-9 was elevated. On suspicion of malignancy, he underwent distal pancreatectomy, with the spleen also resected. Histologically, the cystic mass was diagnosed as a dermoid cyst. Such a tumor of the pancreas is extremely uncommon and, to our knowledge, only 21 cases have been reported in the English and Japanese literature.

Key words : dermoid cyst, pancreas

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 43 : 431—436, 2010]

Reprint requests : Shinji Onda Department of Surgery, Fuji City Central Hospital
50 Takashimacho, Fuji, 417-8567 JAPAN

Accepted : September 16, 2009