

症例報告

## 主膵管との交通を認めた膵漿液性嚢胞腺腫の1例

美濃市立美濃病院外科

村瀬 勝俊 阪本 研一 関野誠史郎 小久保健太郎

主膵管との交通を認め、分枝型 intraductal papillary mucinous neoplasm (以下, IPMN) との鑑別を要し手術に至った漿液性嚢胞腺腫 (serous cystic tumor ; 以下, SCT) macrocystic type の1例を経験したため報告する。症例は63歳の女性で、右背部痛のため当院を受診した。CTで膵頭体移行部に3cm大の嚢胞性病変を指摘された。ERCPで病変は主膵管との交通を認めた。主膵管の拡張は認めなかった。膵液細胞診は悪性所見を認めなかった。Endoscopic ultrasonography (以下, EUS) で壁在結節を認めたため腺腫以上のIPMNと診断した。手術適応と判断したが、手術を希望されなかったため経過観察とした。10か月後のEUSで壁在結節が増大傾向を示したため再度手術をすすめ幽門輪温存膵頭十二指腸切除術を施行した。腫瘍は26×15mm大の多房性の嚢胞性病変で、内腔には褐色の壁在結節様構造物を認めた。病理組織学的検査でSCT macrocystic type と診断された。壁在結節に細胞性成分は認めなかった。

### はじめに

膵漿液性嚢胞腺腫 (serous cystic tumor ; 以下, SCT) は微小嚢胞による蜂巢状構造を特徴とするが、大きな嚢胞によって形成される macrocystic type など肉眼形態の多様性が報告されている<sup>1)2)</sup>。また、SCTは通常主膵管との交通はないとされるが、まれに交通を認めたとする報告例もある<sup>3)~7)</sup>。主膵管との交通を認め、分枝型膵管内乳頭粘液性腫瘍 (intraductal papillary mucinous neoplasm ; 以下, IPMN) との鑑別を要し手術に至った SCT macrocystic type の1例を経験したので報告する。

### 症 例

症例：63歳、女性

主訴：右背部痛

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：平成19年3月に右背部痛を主訴に当院を受診した。腹部CTで膵嚢胞性病変を認めたため精査を行った。

入院時現症：結膜に貧血、黄疸を認めず。腹部は平坦・軟、腫瘤は触知せず、圧痛および自発痛は認めなかった。経過中背部痛は消失していた。

血液検査所見：血液生化学検査所見では異常を認めなかった。腫瘍マーカーはCEA, CA19-9, DUPAN-IIとも正常範囲内であった。

腹部造影CT所見：膵頭体移行部に3cm大、膵体部に1.5cm大の嚢胞性病変を認めた。膵頭体移行部の病変は内部に隔壁を認めた。主膵管の拡張は認めなかった (Fig. 1)。

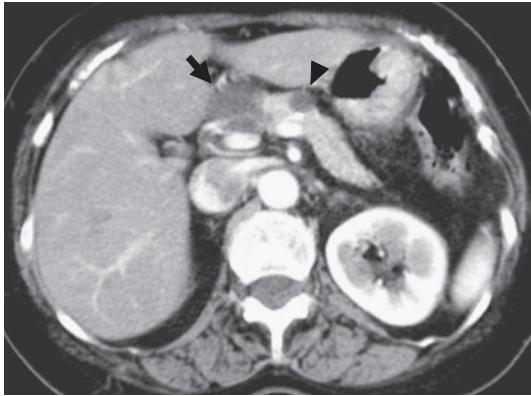
MRI所見：膵頭体移行部、膵体部に嚢胞性病変を認めた。膵頭体移行部には中隔を認め、壁在結節を疑う陰影欠損を認めた (Fig. 2)。

ERCP所見：膵頭体移行部の病変は主膵管との交通を認めた (Fig. 3)。膵体部の病変には交通を認めなかった。主膵管の拡張は認めなかった。十二指腸乳頭の開大、粘液排出は認めなかった。採取した膵液細胞診では悪性所見を認めなかった。

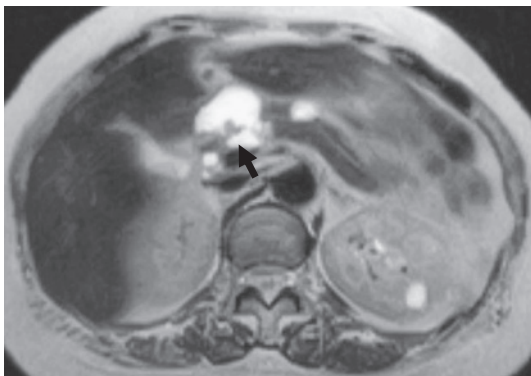
超音波内視鏡検査所見 (Endoscopic ultrasonography ; 以下, EUS) : 膵頭体移行部に30.8×28.2mm大の多房性嚢胞病変を認めた。最も大きな嚢胞壁の一部に乳頭状で14.6×3.9mm大の壁在結節を認めた (Fig. 4)。隔壁にも3mm大の

<2010年1月27日受理>別刷請求先：村瀬 勝俊  
〒501-1192 岐阜市黒野176番地5 平野総合病院外科

**Fig. 1** Enhanced CT showed a multilocular cystic lesion (arrow) 3 cm in diameter in the pancreatic head and body border and a unilocular cystic lesion (arrow head) 1.5cm in diameter in the pancreatic body. The main pancreatic duct was not dilated.



**Fig. 2** Abdominal MRI showed an intramural nodule (arrow) in the cystic lesions in the pancreatic head and body border.

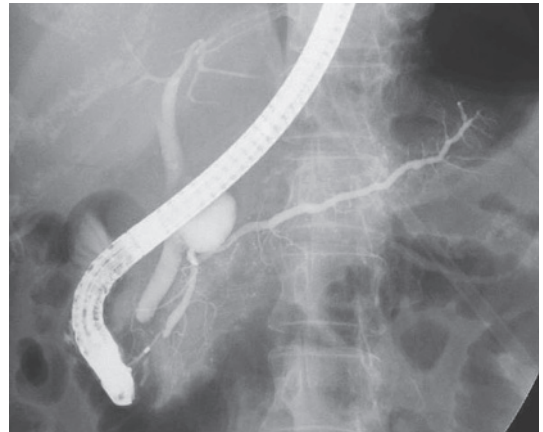


壁在結節を認めた。膵体部には12.2mm大の単房性嚢胞病変を認め、壁在結節は認めなかった。主膵管は2.3mmであった。

以上より、膵頭体移行部の病変は腺腫以上の分枝型IPMNと診断し手術適応と判断したが、患者の希望により経過観察とした。

臨床経過：平成19年9月の腹部造影CTでは膵頭体移行部の病変は12mmと嚢胞径の縮小を認めたが、壁在結節は描出されなかった。主膵管の軽度の拡張を認めた。引き続き経過観察を行った。

**Fig. 3** ERCP showed communication between the cyst and the pancreatic duct, which was not dilated.



平成20年1月のEUSでは膵頭体移行部の病変は14.3×11.9mm大で嚢胞径に著変は認めなかった。壁在結節は12.1×7.2mm大と増大を認め、また主膵管が4.0mmと前回より拡張がみられた(Fig. 4)。

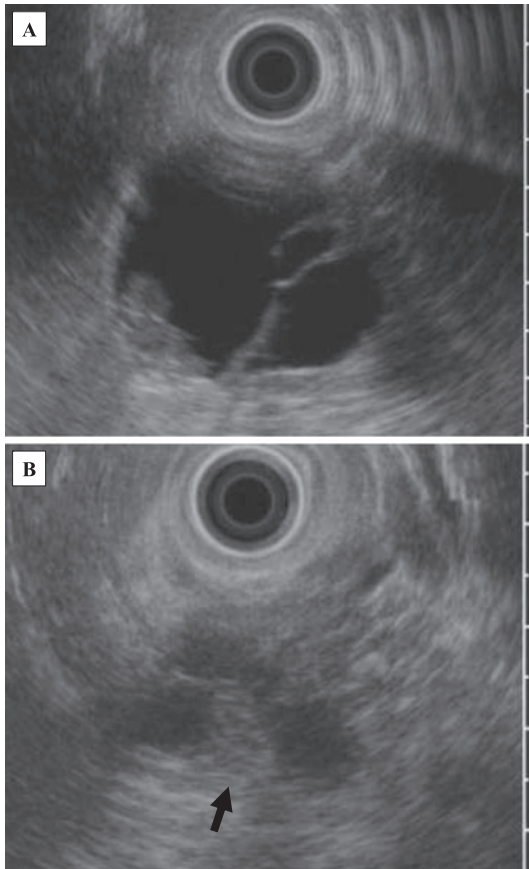
壁在結節の増大傾向と主膵管の拡張傾向を認めることから、再度手術をすすめたところ手術の同意を得られたため手術を施行した。

手術所見：膵頭体移行部と膵体部の前面に嚢胞性病変を認めた。周囲リンパ節腫大はなかった。膵体部の病変の左側で膵を切除する幽門輪温存膵頭十二指腸切除術を施行した。

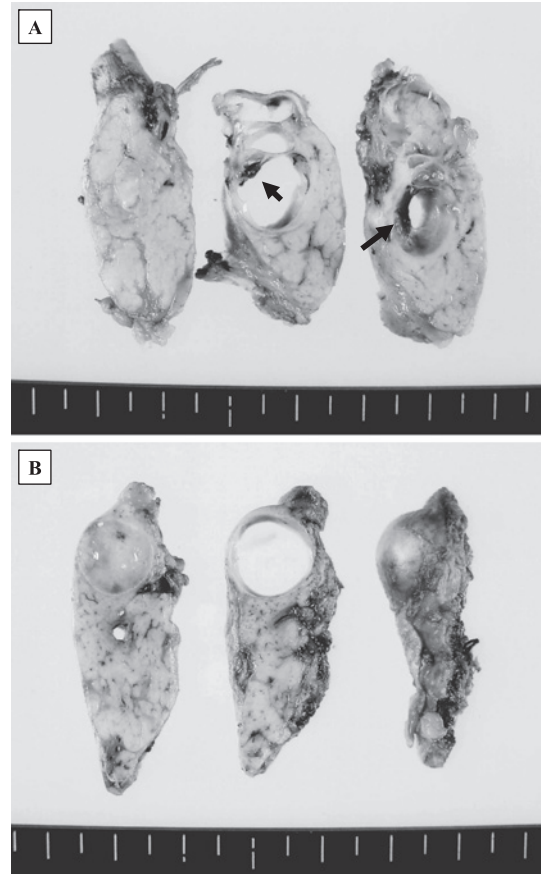
摘出標本所見：膵頭体移行部に26×15mm大の多房性嚢胞病変を認めた。1cm大の嚢胞と数mm大の嚢胞が混在していた。嚢胞の内腔には4×2mm大、中隔にも3mm大の褐色の壁在結節様構造物を認めた。膵体部には12×12mm大の単房性嚢胞病変を認めた。壁在結節はなかった(Fig. 5)。主膵管は3.5mmであった。

病理組織学的検査所見：一層の明るい立方状上皮で覆われた不規則に拡張した大小の嚢胞を認めた。PAS染色では腫瘍細胞内に顆粒状に染まるグリコーゲンの存在を確認した(Fig. 6)。小嚢胞の一部は内腔への軽度の乳頭状増殖を認めたが、壁在結節と思われた部分には細胞性成分は認めなかった。周囲には硝子化、石灰化巣を認めた。細胞異型、細胞分裂像、浸潤所見は認めなかった。

**Fig. 4** Endoscopic ultrasonography showed intramural nodule in the cystic lesion (A). Ten months later, the cystic lesion became smaller, but the intramural nodule (arrow) had grown (B).



**Fig. 5** (A) The cut surface of the tumor in the pancreatic head and body border was multilocular. Brown structure was seen inside of the cyst (arrow). (B) The cut surface of the tumor in the pancreatic body was unilocular.



体部の嚢胞性病変は数層の扁平な上皮で覆われていた。

以上より、膵頭体移行部の病変は SCT macrocystic type、膵体部の病変は単純嚢胞と診断した。術後経過は良好であった。術後1年の時点で再発所見は認めていない。

#### 考 察

膵漿液性嚢胞腺腫は微小嚢胞による蜂巢状構造を特徴とする比較的まれな膵嚢胞性腫瘍である。しかし、このような特徴的な蜂巢状構造とは異なり、単房性や大嚢胞多房性を呈する SCT や、肉眼的に嚢胞状構造を認識できないタイプの SCT の

報告も散見されるようになった<sup>1)2)</sup>。

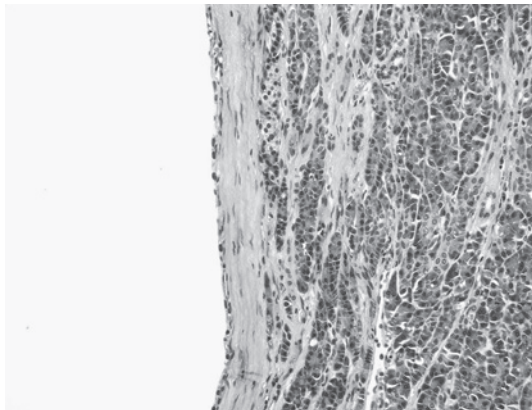
SCT の肉眼形態の分類は諸家により異なり統一されたものはない<sup>1)2)7)</sup>。一二三ら<sup>1)</sup>は SCT の肉眼形態の多様性から、SCT を Type 1 (microcystic type) と Type 2 (macrocystic type) の 2 型に分類し、さらにおのおのを亜分類している。Microcystic type は数 mm 単位の小嚢胞腔から構成される蜂巢状の type 1a (honeycomb type) と、肉眼的には嚢胞部分を認識できず組織学的検索によってのみ SCT と診断可能な type 1b (solid type) とに分類した。Macrocystic type は mm 単位の小嚢胞部分と cm 単位の大嚢胞部分が混在して存在す

る type 2a (macrocytic dominant type) と、mm 単位の小嚢胞は存在せず cm 単位の大嚢胞腔成分のみで構成される type 2b (pure macrocytic type) に分類している。この分類によると自験例は type 2a に相当した。

この肉眼的多様性が画像検査においてその診断を困難としており、mucinous cystic tumor (以下、MCN) や IPMN、膵内分泌腫瘍との鑑別が必要となることもある<sup>8)</sup>。

本症例では macrocytic type であることに加え、主膵管との交通を認めたため術前は分枝型 IPMN と診断した。

Fig. 6 Histological examination of the tumor showed multiple cysts lined with single-layered cuboidal cells. Immunohistochemically, tumor cells were positive for PAS.



藤田ら<sup>9)</sup>は免疫組織化学的な染色パターンから本症の発生母地を中心腺房細胞から小葉間導管にいたるまでの末梢膵導管のいずれかとし、基本的には画像では主膵管との交通は認められないとしている。しかし、本症例のように主膵管との交通のある症例が報告されている<sup>3)~7)</sup>。

医学中央雑誌で「膵漿液性嚢胞腫瘍」をキーワードとして1983年~2008年12月まで、またPubMedで「serous cystadenoma」と「communication pancreatic duct」をキーワードとして1950~2008年までを検索し、造影検査または組織学的に主膵管との交通が確認されたSCTの報告は自験例を含め7例であった (Table 1)。

占拠部位は膵頭部5例、膵尾部2例であった。肉眼形態では6例が macrocytic type で、microcytic type は1例のみであった。嚢胞径は25~50mmであった。全例が術前ERCPで主膵管との交通が確認されていた。主膵管の狭窄、偏位を2例、尾側膵管の拡張を2例、途絶を1例に認めた。記載のない2例を除き主膵管に影響がなかったのは膵尾部の1例のみであった。Furukawaら<sup>4)</sup>はSCTと主膵管との交通の機序につき、徐々に増大するSCTによる圧迫で主膵管との交通を来したと推測しているが、これを示唆する所見と思われた。自験例では経過中に嚢胞径が縮小し、また同時に尾側膵管の拡張が認められるようになった。腫瘍による圧迫で主膵管との交通を来し、交通の結果嚢胞が縮小したのではと推測された。

Table 1 Reported cases of SCTs with communicating with a pancreatic duct

Author	Year	Age	Sex	Location of the pancreas	Type	Size (mm)	Symptom	Change of MPD	Tentative diagnosis	Operative method
Delcenserie <sup>3)</sup>	1988	46	F	Pt	macro	30	epigastralgia	NC	SCT	tumorectomy
Furukawa <sup>4)</sup>	1996	76	M	Ph	micro	40	abdominal pain	obstruction	SCT	PPPD
Imamura <sup>5)</sup>	1998	49	F	Ph	macro	25	(-)	stenosis, dilatation	MCN	PPPD
Hashimoto <sup>6)</sup>	2001	42	F	Ph	macro	50	(-)	deviation	MCN	PPPD
Watanabe <sup>7)</sup>	2003	37	F	Ph	macro	40	epigastralgia	ND	ND	PD
Watanabe <sup>7)</sup>	2003	61	M	Pt	macro	30	(-)	ND	ND	DP
Our case		63	F	Phb	macro	26	back pain	dilatation	IPMN	PPPD

Ph : head, Pb : body, Pt : tail, macro : macrocytic type, micro : microcytic type, NC : no change, ND : not described

SCT : serous cystic tumor, MCN : mucinous cystic neoplasm, IPMN : intraductal papillary mucinous neoplasm

PPPD : pylorus preserving pancreaticoduodenectomy, PD : pancreaticoduodenectomy, DP : distal pancreatectomy

術前に SCT が疑われたのは2例で1例は microcystic type であった。他は MCN 2例, IPMN 1例であった。macrocytic type の診断の困難性が示唆された。

切除標本では壁在結節と思われた部分には褐色の付着物があるのみで細胞性成分は認めなかった。Hashimoto ら<sup>6)</sup>の報告例でも術前の超音波検査で内腔の乳頭状隆起を指摘しているが病理学的に詳細は述べられていない。本症例では付着物の成分についての検討をすべきであったと思われた。

SCT は von Hippel Lindau 病の患者に合併すること<sup>10)</sup>や他の悪性疾患を併発しやすいこと<sup>11)</sup>が報告されているが、本症例では家族歴を含めての von Hippel Lindau 病の所見はなく、検索範囲内に悪性疾患の合併を認めなかった。

SCT の悪性の報告はあるものの極めてまれであり<sup>12)13)</sup>、確定診断がつけば経過観察が基本である。渡辺ら<sup>7)</sup>は SCT の相対的手術適応として、① IPMN, MCN, 内分泌腫瘍などと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。④ 10cm に達する巨大例を提唱している。また、術式は局所切除が原則であり、縮小手術に努めるべきと述べている。

本症例は EUS で壁在結節が疑われ腺腫以上の分枝型 IPMN の診断で手術適応となった。壁在結節を認めなければ分枝型 IPMN として経過観察となる症例であったと思われ、現在分枝型 IPMN として経過観察されている症例の中にも macrocystic type の SCT が含まれている可能性が示唆された。

なお、本論文の要旨は第 64 回日本消化器外科学会総会(2009年7月, 大阪)で発表した。

稿を終えるにあたり、病理組織診断においてご指導いた

だいた下川病理研究所 下川邦泰先生に深謝致します。

## 文 献

- 1) 一二三倫郎, 山根隆明, 川口 哲ほか: 漿液性嚢胞腺腫の内眼形態の多様性に関する検討. 胆と膵 22: 91—98, 2001
- 2) 山崎滋孝, 須田耕一, 信川文誠ほか: 形態ならびに病理学的所見からみた漿液性嚢胞腺腫瘍. 胆と膵 24: 233—237, 2003
- 3) Delcenserie R, Dupas JL, Joly JP et al: Microcystic adenoma of the pancreas demonstrated by endoscopic retrograde cholangiopancreatography. Gastrointest Endosc 34: 52—54, 1988
- 4) Furukawa H, Takayasu K, Mukai K et al: Serous cystadenoma of the pancreas communicating with a pancreatic duct. Int J Pancreatol 19: 141—144, 1996
- 5) 今村 敦, 齊藤隆道, 中本博之ほか: 高度な膵管交通を認め鑑別診断が困難であった漿液性嚢胞腺腫の1例. 日臨外会誌 59: 2152—2156, 1998
- 6) Hashimoto M, Watanabe G, Miura Y et al: Macrocystic type of serous cystadenoma with a communication between the cyst and pancreatic duct. J Gastroenterol Hepatol 16: 836—838, 2001
- 7) 渡辺五郎, 松田正道, 橋本雅司: 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
- 8) 中村雄太, 乾 和郎, 芳野純治ほか: US・EUS 所見からみた SCT—良・悪性の鑑別は可能か—。胆と膵 24: 239—244, 2003
- 9) 藤田順子, 蓮見昭武, 菅谷 宏ほか: 漿液性嚢胞腺腫の2例. 膵臓 11: 378—384, 1996
- 10) Neumann HP, Dinkel E, Brambs H et al: Pancreatic lesions in the von Hippel-Lindau syndrome. Gastroenterology 101: 465—471, 1991
- 11) 信川文誠, 須田耕一, 高瀬 優ほか: SCT の概念と臨床病理学的特徴. 肝・胆・膵 44: 35—42, 2002
- 12) 松熊 晋, 箱崎幸也, 須田耕一ほか: 病理学的所見からみた悪性漿液性嚢胞腺腫瘍 (SCT). 胆と膵 24: 255—258, 2003
- 13) 吉見直己, 坂本寛文, 中山 崇: 病理学的所見からみた悪性 SCT. 胆と膵 24: 259—263, 2003

## A Case of Serous Cystadenoma of the Pancreas Communicating with a Pancreatic Duct

Katsutoshi Murase, Ken-ichi Sakamoto, Seishiro Sekino and Kentaro Kokubo  
Department of Surgery, Mino Municipal Hospital

A 63-year-old woman seen for right back pain was found in enhanced computed tomography (CT) to have a multilocular cystic lesion 3cm in diameter in the pancreatic head and body border. Endoscopic retrograde cholangiopancreatography showed communication between the cyst and the pancreatic duct, which was not dilated. Pancreatic juice cytology indicated no malignancy. Endoscopic ultrasonography (EUS) showed an intramural nodule in the cystic lesion. Based on a tentative diagnosis of intraductal papillary mucinous neoplasm branch subtype (adenoma or adenocarcinoma) of the pancreas, we recommended surgery, but the woman desired follow-up. Ten months later, EUS showed that intramural nodules in the cystic lesion had grown, so we conducted pylorus preserving pancreaticoduodenectomy. The cut tumor surface was multilocular and 26 × 15 mm. Histological examination showed multiple cysts lined with single-layered cuboidal cells. Immunohistochemically, tumor cells were positive for PAS. Macroscopically, a brown structure was seen inside of the cyst, but cells were not seen histologically. The definitive pathological diagnosis was serous cystic tumor macrocystic type.

**Key words** : serous cystic tumor, pancreatic duct communication, macrocystic type

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 43 : 942—947, 2010]

**Reprint requests** : Katsutoshi Murase Department Surgery, Hirano General Hospital  
176-5 Kurono, Gifu, 501-1192 JAPAN

**Accepted** : January 27, 2010