

— 症例報告 —

嚢胞内出血に伴い信号強度の異なった多房性嚢胞を呈した 膵漿液性嚢胞腺腫の1例

山下 純平¹⁾, 前平 博充²⁾, 飯田 洋也²⁾, 森 治樹²⁾,
安川 大貴²⁾, 塩見 一徳²⁾, 福尾 飛翔²⁾, 前川 毅²⁾, 村本 圭史²⁾,
竹林 克士²⁾, 小島 正継²⁾, 植木 智之²⁾, 貝田 佐知子²⁾, 三宅 亨²⁾,
石川 健²⁾, 山口 剛²⁾, 木村 祥佳³⁾, 松原 亜季子³⁾, 谷 眞至²⁾

- 1) 滋賀医科大学 医学部医学科
- 2) 滋賀医科大学 外科学講座
- 3) 滋賀医科大学医学部附属病院 病理診断科

抄録: 症例は33歳, 女性. 経時的に増大する膵体部嚢胞性病変を認めた. MRI ではT1強調画像で低信号を呈する部位とT1強調画像で淡い高信号を呈する, 信号強度の異なる大小不同の多房性嚢胞性病変を認め, MRCP および超音波内視鏡検査で主膵管拡張および腫瘍と主膵管との交通が疑われた. 以上よりmixed typeの膵漿液性嚢胞腺腫を疑ったが粘液性嚢胞腺腫や膵管内乳頭粘液性腫瘍を否定できず, 腹腔鏡下脾温存膵体尾部切除術を施行した. 病理組織学的検査所見では卵巣様間質は認めず, 主膵管交通も認めず, mixed typeの膵漿液性嚢胞腺腫と診断した. 膵漿液性嚢胞腺腫は漿液性嚢胞液を有するが, 異なった信号強度を呈する多房性嚢胞を有するものはまれである. 今回われわれは, 信号強度の異なった多房性嚢胞を呈した膵漿液性嚢胞腺腫の1例を経験したので報告する.

キーワード: 漿液性嚢胞腺腫, 粘液性嚢胞腺腫, MRI

はじめに

膵漿液性嚢胞腺腫 (serous cystic neoplasm: SCN) は緩徐に増大する良性腫瘍といわれており, 経過観察可能な疾患とされているが, 有症状である場合や急速な増大傾向を示す場合, 他の低悪性度腫瘍や膵癌との鑑別が困難な場合には手術適応となる^{1, 2)}. 通常SCNでは粘稠度の低い漿液性の嚢胞液を反映してCTでは低吸収, MRIではT1強調画像で低信号, T2強調画像で高信号を呈するのが特徴であり³⁾, 異なった信号強度を呈する多房性嚢胞を有するSCNはまれである. 今回われわれは, 信号強度の異なった多房性嚢胞を呈した膵SCNの1例を経験したので報告する.

症例

症例: 33歳, 女性

主訴: 発熱, 腹痛.

既往歴: 31歳時に帝王切開を施行.

家族歴: 祖父に胆管癌, 祖母に肺癌を認めた.

現病歴: 3年前に発熱, 腹痛を契機に近医受診し, CT検査で卵巣出血および膵嚢胞性病変を指摘された.

定期的に経過観察されていたが経時的に増大してきたため当科紹介受診した.

初診時現症: 身長150cm, 体重57kg, 体温36.3℃, 血圧105/55mmHg, 脈拍71/min. 腹部は平坦, 軟で圧痛を認めなかった.

血液検査所見: 白血球数5700/ μ L, CRP 0.10mg/dLと炎症反応の上昇は認めなかった. アミラーゼ値は114 U/Lであったがリパーゼ値は166 U/Lと上昇を認めた. 腫瘍マーカーは, CEA 0.6 ng/mL, CA19-9 35 U/mL, DUPAN-2 25U/mLと正常範囲内であった.

腹部CT検査: 3年前のCT検査では膵体部に主膵管拡張を伴わない18mm大の嚢胞性病変を認めた (Fig. 1A). 当科受診時の造影CT検査では, 嚢胞性病変は嚢胞内部に隔壁を有する多房性嚢胞として描出され, 腫瘍径は50mmと増大し, その尾側主膵管径が5.8mmと拡張を認めた (Fig. 1B, 1C). 腫瘍より尾側の膵実質は3年前と比較して萎縮していた.

腹部MRI検査: 膵体部にT1強調画像で低信号, T2強調画像で高信号を呈する部位とT1強調画像で淡い高信号, T2強調画像で高信号を呈する部位が混在する

Received: October 14, 2020 Accepted: October 26, 2020

Correspondence: 滋賀医科大学外科学講座 前平 博充

〒520-2192 大津市瀬田月輪町 hiro0103@belle.shiga-med.ac.jp



図1. 腹部CT検査

A: 3年前の腹部単純CT. 膵体部に18mm大の嚢胞性腫瘍を認めた(矢印).

B, C: 術前の腹部造影CT. 膵体部に50mm大に増大し主膵管拡張を伴った多房性嚢胞性腫瘍を認めた(矢頭).

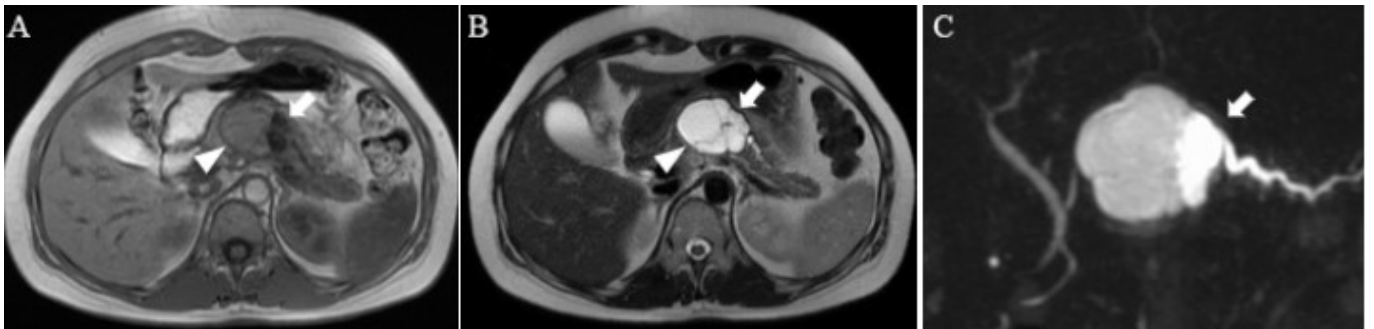


図2. 腹部MRI検査

A, B: 膵体部に多房性嚢胞性病変を認めた. 嚢胞内部はT1強調画像で低信号, T2強調画像で高信号を呈しているものと(矢印), T1強調画像で淡い高信号, T2強調画像で高信号を呈する部位(矢頭)を認めた.

C: MRCP検査では嚢胞性腫瘍と主膵管との交通を疑う所見を認めた.

嚢胞性病変を認めた. 嚢胞壁は幅3mmであった(Fig. 2A, 2B). MRCP検査では拡張した主膵管と嚢胞が交通しているように観察された(Fig. 2C).

超音波内視鏡検査: 膵体部に大小不同の嚢胞が混在する, 多房性嚢胞性病変を認めた. 嚢胞内のエコー輝度は無エコーの嚢胞と低エコーの嚢胞が混在していた. 主膵管と嚢胞との交通を疑う部位を認めた(Fig. 3).

以上より, mixed typeのSCNを第一に考えたが, 嚢胞壁が厚いことと嚢胞内容の画像所見から粘液性嚢胞腺腫(mucinous cystic neoplasm: MCN)も否定できず, また主膵管との交通が疑われ主膵管拡張も伴っていたために分枝膵管型膵管内乳頭粘液性腫瘍(Intraductal papillary mucinous neoplasm: IPMN)も否定できなかったことから, 切除の方針とした.

手術所見: 6点ポートでの腹腔鏡下脾温存膵体尾部切除術, D1郭清を施行した. 腫瘍は周囲臓器と癒着なく, 脾静脈からの剥離もできた. 手術時間は313分, 出血は100mlであった.

摘出標本: 膵体部に60×50×40mm大の弾性軟な腫瘍を認めた(Fig. 4A). 固定標本では, 断面で大嚢胞と小嚢胞の集簇を認めた(Fig. 4B).

病理組織学的所見: 腫瘍は大小さまざまな嚢胞から構成され, 嚢胞壁は淡明な細胞質を有する立方状の上皮細胞で形成されていた(Fig. 5A, 5B). 卵巣様間質は認めなかった. また嚢胞と主膵管との交通も認めなかった. 一部の嚢胞内には, 赤血球の集簇を認め嚢胞内出血が示唆された(Fig. 5C). 以上より, mixed type

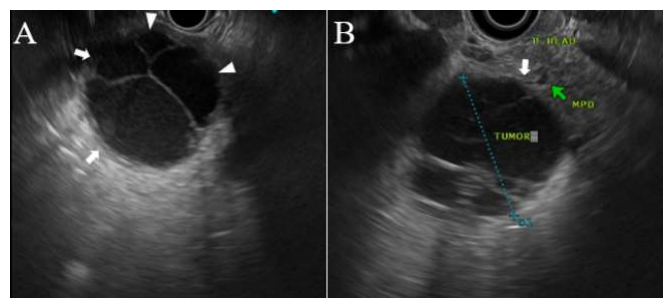


図3. 超音波内視鏡検査

A: 膵体部に多房性嚢胞性腫瘍を認め, 嚢胞内容は低エコーを呈する部位(矢印)と無エコーを呈する部位(矢頭)を認めた.

B: 嚢胞性病変は主膵管との交通が疑われた(矢印).

のSCNと診断した.

術後経過: 術後合併症なく経過し, 第9病日に退院した.

考察

膵SCNは, 1978年にCompagnoら⁴⁾やHodgkinsonら⁵⁾が最初に提唱した膵嚢胞性疾患であり, 膵腫瘍の1-2%, 膵嚢胞性腫瘍の10-15%を占めており, 中年女性に多く, 膵体尾部に発生することが多いとされる²⁾. 膵SCNの形態は, 最も典型的な10mm以下の小嚢胞が集簇するmicrocystic type, 大きさが10mm以上の嚢胞が主体のmacrocytic type, 嚢胞構造が乏しいsolid type, 大小の嚢胞が混在するmixed typeの4種類に

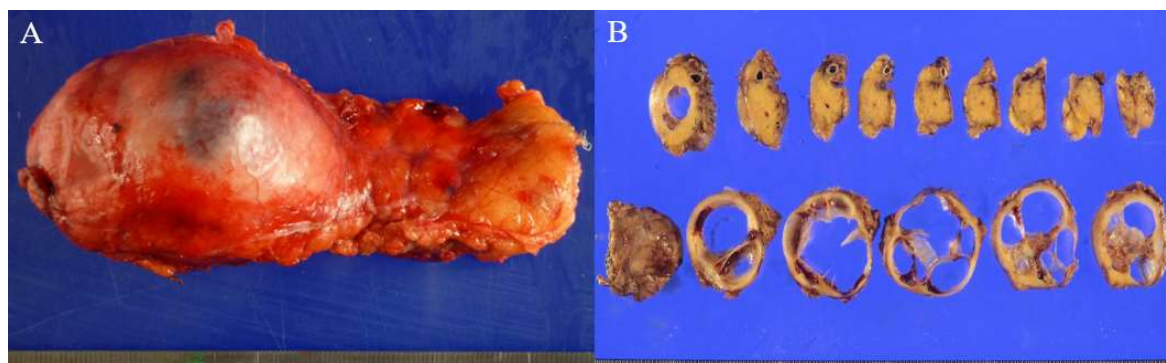


図 4. 摘出標本

A: 膵体部に嚢胞性腫瘍を認めた. B: 嚢胞性病変は大小様々な嚢胞が集簇していた.

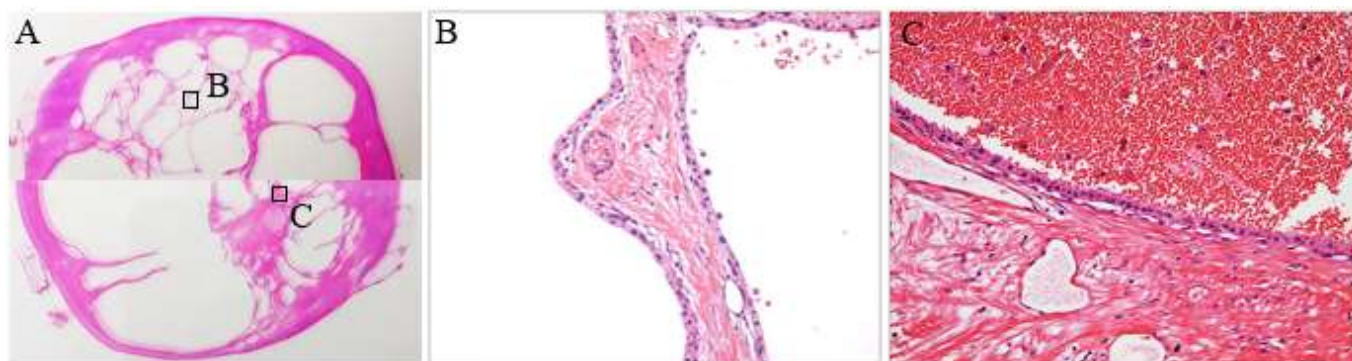


図 5. 病理組織学的所見 (H.E 染色)

- A: 大小様々な嚢胞の集簇を認めた. (ルーペ像)
- B: 嚢胞壁は淡明な細胞質を有する立方状の上皮細胞による被膜を認めた. 卵巣様間質は認めなかった. (×200 倍)
- C: 一部の嚢胞内には赤血球の集簇を認めた. (×200 倍)

分類される⁶⁾. 嚢胞内容は通常粘稠度の低い漿液性成分であり, CT では低吸収, MRI では T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で高信号を呈するのが特徴である⁷⁾. 膵 SCN は通常は良性腫瘍であるため経過観察が可能であるが, 他臓器転移, リンパ節転移, 周囲臓器への浸潤傾向などを認めたものもまれながら報告されており⁸⁻¹⁰⁾, 確定診断が得られず診断に迷う場合や圧迫による機能障害を示すもの, 腫瘍サイズが大きい場合には外科的切除が推奨される¹⁰⁾. 膵 SCN は緩徐に増大するとされており, その平均増大速度は 6.0mm/年と報告されている¹⁾. 増大速度は腫瘍サイズにより違い, 40mm 以下の腫瘍では 1.2mm/年, 40mm 以上の腫瘍では 19.8mm/年と報告されている¹⁾. 本症例では初診時は 18mm 大の腫瘍で 11.0mm/年の増大速度であったことから, 急速増大をきたしたと考えられる. この原因の一つとして, 後述する嚢胞内出血の可能性があらわされた.

本症例で術前診断に苦慮した原因の一つとして, 信号強度の異なった多房性嚢胞を呈していたことがあげられる. 膵 SCN では嚢胞内容は漿液性であることを反映して, MRI における内容液の信号強度は T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で高信号を呈する³⁾. しかし, 通常と異なった信号強度を示すことがまれにあり, その原因として嚢胞内出血が報告されている⁷⁾. 本症例

でも, 嚢胞内に赤血球の充満を認める部位があり, 嚢胞内出血を認めたと思われる. つまり本来の漿液性内容液に出血が混ざることによって, 嚢胞内容の信号強度が T1 強調画像で淡い高信号に変化したと考えられる. 本症例において, 嚢胞内容の信号強度から粘稠度が高い成分が疑われたため, MCN との鑑別に苦慮したが, 嚢胞内に信号強度の違う成分が認められた際には, 隔壁に区切られた嚢胞内容液が出血により信号強度が変化した可能性を考える必要があると思われた.

さらに本症例では, 腫瘍より尾側の主膵管拡張をきたし, 主膵管との交通が疑われる画像所見を呈していたことが術前診断を困難にしたと考える. 通常 SCN は主膵管との交通は認めないとされるが¹¹⁾, まれながら SCN と主膵管が交通している報告を認める¹²⁻¹⁵⁾. このため, 膵 SCN と IPMN との鑑別が時に困難となることがある¹⁵⁾. 本症例では画像上は主膵管と腫瘍との交通が疑われたが病理組織学的には交通は認めなかった. そのため本症例では内視鏡的逆行性胆道膵管造影検査により主膵管との交通がないことが証明できた可能性はあるが, 侵襲的な検査であることと増大傾向で切除の方針としていたために施行しなかった. CT 検査や MRI 検査, 超音波内視鏡検査などさまざまな低侵襲な診断ツールが普及したものの, 膵嚢胞性疾患の鑑別に苦慮することがあり, 今後さらなる画像検査の精度の

向上が望まれる。

文献

- [1] Tseng JF, Warshaw AL, Sahani DV, et al. Serous cystadenoma of the pancreas: Tumor growth rates and recommendations for treatment. *Ann Surg.* 242:413–212,2005
- [2] 行田悠, 大黒聖二, 吉本次郎, 他: 主膵管拡張を伴った膵漿液性嚢胞腺腫の2切除例. *日消外会誌* 51:631-639,2018
- [3] 浦田孝弘, 一二三倫郎, 竹熊与志, 他: 膵SCNの画像診断—典型例から非典型例まで. *肝胆膵画像* 12:693-701,2010
- [4] Compagno J, Oertel JE. Microcystic adenomas of the pancreas (glycogen-rich cystadenomas): a clinicopathologic study of 34 cases. *Am J Clin Pathol.* 69:289-298,1978
- [5] Hodgkinson DJ, ReMine WH, Weiland LH. Pancreatic cystadenoma. A clinicopathologic study of 45 cases. *Arch Surg.* 113:512-519,1978
- [6] Galanis C, Zamani A, Cameron JL, et al. Resected serous cystic neoplasms of the pancreas: a review of 158 patients with recommendations for treatment. *J Gastrointest Surg.* 11:820–826,2007
- [7] 永倉千紗子, 菊山正隆, 松村和宜, 他: 粘液性嚢胞腫瘍に類似した所見を呈した膵漿液性嚢胞腺腫の1例—疾患鑑別についての考察— *日消誌* 109:1230-1235,2012
- [8] King JC, Ng TT, White SC, et al. Pancreatic serous cystadenocarcinoma: a case report and review of the literature. *J Gastrointest Surg.* 13:1864–1868,2009
- [9] Jais B, Rebours V, Malleo G, et al. Serous cystic neoplasm of the pancreas: a multinational study of 2622 patients under the auspices of the International Association of Pancreatology and European Pancreatic Club (European Study Group on Cystic Tumors of the Pancreas). *Gut.* 65:305–312,2016
- [10] 木村理, 森谷敏幸, 花田敬士, 他. 膵漿液性嚢胞腫瘍 (Serous cystic neoplasm) の全国症例調査 日本膵臓学会膵嚢胞性腫瘍委員会. *膵臓* 27:572–583,2012
- [11] 多田稔. 膵嚢胞性疾患と発がん. *総合臨床* 60:681–683,2011
- [12] Le Borgne J, de Calan L, Partensky C. Cystadenomas and cystadenocarcinomas of the pancreas: a multiinstitutional retrospective study of 398 cases. *French Surgical Association. Ann Surg.* 230:152–161,1999
- [13] Berman L, Mitchell KA, Israel G, et al. Serous cystadenoma in communication with the pancreatic duct: an unusual radiologic and pathologic entity. *J Clin Gastroenterol.* 44:133-135,2010
- [14] Matsubayashi H, Oka Y, Ito T, et al. A Case of Serous Cystadenoma Communicating with a Stenotic Santorini's Duct and a Dilated Main Pancreatic Duct. *J Gastrointest Liver Dis.* 25:551-554,2016
- [15] 酒井大輔, 石川卓哉, 田中浩敬, 他. 主膵管と交通した膵漿液性嚢胞腺腫の1症例. *肝胆膵治研誌* 15:71-78,2018

A Case Report of Serous Cystadenoma of the Pancreas with Different Signal Intensities in the Multilocular Cysts due to Intracystic Hemorrhage

Junpei YAMASHITA¹⁾, Hiromitsu MAEHIRA²⁾, Hiroya IIDA²⁾, Haruki MORI²⁾, Motonori SHIOMI²⁾, Asuka FUKUO²⁾, Takeru MAEKAWA²⁾, Keiji MURAMOTO²⁾, Katsushi TAKEBAYASHI²⁾, Masatsugu KOJIMA²⁾, Tomoyuki UEKI²⁾, Sachiko KAIDA²⁾, Toru MIYAKE²⁾, Ken ISHIKAWA²⁾, Tsuyoshi YAMAGUCHI²⁾, Shoka KIMURA³⁾, Akiko MATSUBARA³⁾, and Masaji TANI²⁾

1) The School of Medicine, Shiga University of Medical Science

2) Department of Surgery, Shiga University of Medical Science

3) Division of Diagnostic Pathology, Shiga University of Medical Science Hospital

Abstract A 33-year-old woman presented at our hospital with cystic tumor increased over time at pancreatic body. Magnetic resonance image revealed multilocular cysts with different signal intensities, which were mixed to low and slightly high intensities in T1 weighted image. Moreover, the connection of the cyst and main pancreatic duct was suspected by magnetic resonance cholangiopancreatography and endoscopic ultrasonography. We diagnosed as mixed-type serous cystadenoma, yet we could not contradict mucinous cystadenoma and intraductal papillary mucinous neoplasm. Therefore, we performed laparoscopic spleen preserved distal pancreatectomy. Histopathological findings revealed mixed-type serous cystadenoma, and the connection of the cyst and main pancreatic duct was not seen. Serous cystadenoma usually has serous discharge in the cyst and shows uniform signal intensity in the image findings. However, serous cystadenoma with different signal intensities in the multilocular cysts is relatively rare. We described a case of serous cystadenoma of the pancreas with different signal intensities in the multilocular cysts that was treated by laparoscopic surgery.

Keyword serous cystadenoma, mucinous cystadenoma, magnetic resonance image