

核出術を施行した臍頭部リンパ上皮囊胞の1例

メタデータ	言語: Japanese 出版者: 公開日: 2017-10-05 キーワード (Ja): キーワード (En): 作成者: 寺川, 裕史, 牧野, 勇, 正司, 政寿, 中沼, 伸一, 酒井, 清祥, 林, 泰寛, 中川原, 寿俊, 宮下, 知治, 田島, 秀浩, 高村, 博之, 二宮, 致, 北川, 裕久, 伏田, 幸夫, 藤村, 隆, 尾山, 武, 井上, 大, 小坂, 一斗, 蒲田, 敏文, 太田, 哲生 メールアドレス: 所属:
URL	http://hdl.handle.net/2297/40619

核出術を施行した膵頭部リンパ上皮囊胞の1例

寺川 裕史¹⁾・牧野 勇¹⁾・正司 政寿¹⁾・中沼 伸一¹⁾・酒井 清祥¹⁾
林 泰寛¹⁾・中川原寿俊¹⁾・宮下 知治¹⁾・田島 秀浩¹⁾・高村 博之¹⁾
二宮 致¹⁾・北川 裕久¹⁾・伏田 幸夫¹⁾・藤村 隆¹⁾・尾山 武²⁾
井上 大³⁾・小坂 一斗³⁾・蒲田 敏文³⁾・太田 哲生¹⁾

要約：症例は56歳、男性。検診にて膵頭部腫瘍を指摘され、当科紹介となった。腹部USでは膵頭部に多房性囊胞性病変を認め、内部は多彩なエコー輝度が混在するモザイク状であった。CTでは膵外に突出する境界明瞭な多房性囊胞性病変として描出され、囊胞壁および隔壁に造影効果を認めた。MRIにおいては自由水の信号と比較してT1強調像ではより高い信号、T2強調像ではより低い信号、拡散強調像ではより高い信号を呈しており、粘調度や蛋白成分の高い内容物の存在が示唆された。年齢、性別、画像所見およびCA19-9高値などを総合的に評価し、lymphoepithelial cyst (LEC) を第一に疑った。他の膵囊胞性疾患が否定できないため切除生検としての腫瘍核出術を施行し、病理学的にLECと診断した。詳細な画像検査に加え、性別やCA19-9値などを総合的に評価することにより、膵LECを疑うことが可能であると考えられた。

Key words : 膵リンパ上皮囊胞、膵囊胞、核出術

はじめに

膵リンパ上皮囊胞 (lymphoepithelial cyst : LEC) は、膵囊胞性疾患の中でも比較的まれな良性疾患であり、他の膵囊胞性疾患との鑑別が臨床上問題となる。今回、画像検査と臨床的特徴を総合的に評価することで、術前に膵LECを疑い核出術を施行した1例を経験したので報告する。

I. 症 例

患者：56歳、男性。

主訴：なし（検診異常）。

既往歴：4歳、右鼠径ヘルニア。51歳、大腸ポリープ（内視鏡的粘膜切除術）。

現病歴：ドック検診を受診した際に膵頭部囊胞性病変およびCA19-9高値を指摘され、精査加療目的に当科に紹介となった。自覚症状はとくに認めていなかった。

現症：身長177.0cm、体重79.0kg、BMI25.2、腹部は平坦、軟であり圧痛は認めなかった。腫瘍は触知しなかった。

血液検査所見：血算、肝胆道系酵素、膵酵素に異常を認めなかった。CA19-9は96U/mLと高値であった。

腹部超音波検査所見：膵頭部に60mm大の被膜を有する腫瘍性病変を認めた。病変の内部は多彩なエコー輝度が混在するモザイク状であった（図1）。

腹部造影CT所見：膵頭部に60mm大の多房性囊胞性病変を認めた。膵頭部の頭側、背側に突出するようになんでし、門脈、総胆管、総肝動脈と近接していた。

A Case of Lymphoepithelial Cyst of The Pancreas Diagnosed Preoperatively and Performed Enucleation

Hirofumi Terakawa et al

1) 金沢大学附属病院消化器・乳腺・移植再生外科
(〒920-8641 金沢市宝町13-1)

2) 同 病理部

3) 同 放射線科

論文採択日：2014年3月4日



図 1 腹部超音波所見

脾頭部に境界明瞭な 60 mm 大の腫瘍性病変を認め、病変内部は多彩なエコー輝度が混在するモザイク状であった（白矢印）。

境界は明瞭であり、囊胞壁および隔壁に造影効果を認めたが、内部に充実成分は認めなかった。主脾管の拡張や周囲リンパ節腫大は認めなかった（図 2）。

腹部 MRI 所見：本症例の肝内に存在する囊胞と脾頭部囊胞性病変の信号強度を比較すると、脾頭部囊胞性病変は T1 強調像ではより高い信号、T2 強調像ではより低い信号、MRCP ではより低い信号、拡散強調像ではより高い信号を呈していた。このことから、脾頭部囊胞性病変の内腔には、自由水と比較して粘調あるいは高蛋白の内容物や囊胞内出血の存在が示唆された（図 3）。脂肪抑制画像では信号変化はみられなかった。

内視鏡的逆行性胆管脾管造影 (ERCP) 所見：主脾管には異常所見はみられなかった。主脾管と囊胞性病変に交通は認められなかった。

術前診断：脾外に突出する境界明瞭な囊胞性病変であること、US で病変内部がモザイク状であったこと、MRI にて特徴的な信号を呈していたこと、CA19-9 が高値であったことなどから、脾 LEC が第一に疑われた。しかし、粘液性囊胞腫瘍 (mucinous cystic neoplasm : MCN) や脾管内乳頭粘液腫瘍 (intraductal papillary mucinous neoplasm : IPMN) など他の脾囊胞性疾患が完全に否定できないため、切除生検としての手術を行う方針とした。

手術：開腹下脾頭部腫瘍核出術を施行した。腫瘍は

脾実質とごく小範囲で癒着しているのみであり、容易に剥離可能であった。腫瘍摘出後、腫瘍内部のケラチン様物質を確認し、脾 LEC と診断して手術を終了した。

病理組織学的所見：肉眼的に白色で均一な厚さの壁を有する多房性囊胞がみられ、内部には角化物が充満していた。組織学的に囊胞内腔は重層扁平上皮で被覆され、上皮下にはリンパ球の帶状集簇を認めており、組織学的にも脾 LEC と診断された（図 4）。

術後経過：術後は脾液瘻の合併もなく経過は良好であった。CA19-9 は正常化し、現在 15 ヶ月が経過するが、再発所見を認めていない。

II. 考 察

脾 LEC は、1985 年に Luchtrath ら¹⁾により、脾臓に発生した鰓弓囊胞類似疾患として初めて報告されたまれな良性の脾囊胞性疾患であり、その後 Truong ら²⁾が lymphoepithelial cyst of the pancreas と呼ぶことを提唱した。松崎ら³⁾は本邦報告例 106 例をまとめ報告しているが、その報告によると男女比は 93:13、平均年齢は 59.8 歳（29~80 歳）と中年男性に好発し、脾頭部、体部、尾部にほぼ同程度に発生し、大きさは 5 mm~成人頭大（平均 50 mm）で、多房性が 80%、單房性が 20% とされている。自覚症状を認めない症例が多いが、64% の症例で CA19-9 の上昇を認めていたというものが特徴的所見である。本症例も中年男性、腫瘍の大きさ 60 mm、多房性、CA19-9 高値と、脾 LEC の特徴に一致していた。

本疾患の病理組織学的特徴は、重層扁平上皮に覆われた囊胞壁とその周囲を取り囲むように発達したリンパ組織からなる二層構造である。Adsay ら⁴⁾は、内腔を扁平上皮で裏打ちされた脾囊胞を三つに分類しており、皮膚付属器などを含む場合を dermoid cyst、囊胞の外側が副脾で覆われている場合を epidermoid cyst、囊胞の外側がリンパ組織で覆われている場合を LEC としているが、いずれも内部に脂質やケラチン様物質を含むことが共通した特徴である。

脾 LEC は基本的には良性疾患であるため、確定診断ができる、無症状であれば経過観察すべきと考えられる。しかし、脾 LEC は内部の性状により多彩な画像所見を呈するため他の脾囊胞性疾患との鑑別が困難であり、外科的切除が選択されることがある⁵⁾。超音波内視鏡下穿刺吸引細胞診 (EUS-FNA) が診断に有用であったとの報告もあるが^{6,7)}、現在本邦では脾囊胞性疾患に対する EUS-FNA は推奨されていないため⁸⁾、術前に組織学的に他の囊胞性疾患を否定することは困難



図 2 腹部造影 CT 所見

- a : 膵頭部に境界明瞭な 60 mm 大の多房性囊胞性病変（黒矢印）を認めた。病変は胰頭部の頭側、背側に突出し、門脈（白矢頭）、総肝動脈（黒矢頭）と近接していた。囊胞壁および隔壁に造影効果を認めた。内部には充実成分は認めなかった。
- b : 胰頭部の囊胞性病変（黒矢印）は胰内胆管（白矢印）と近接していた。

a | b

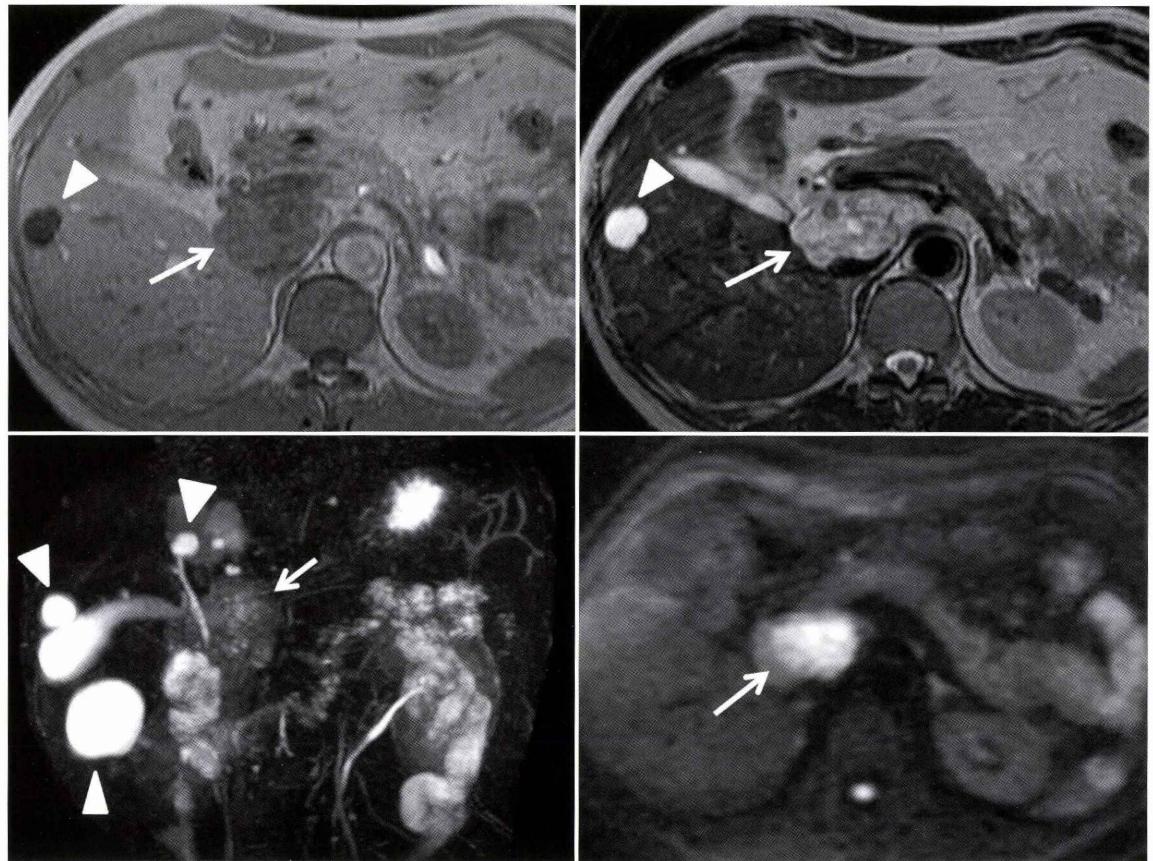


図 3 腹部 MRI 所見

- a : T1 強調像；胰頭部の囊胞性病変（白矢印）は肝囊胞（白矢頭）の信号と比較するとより高い信号を呈した。
- b : T2 強調像；胰頭部の囊胞性病変（白矢印）は肝囊胞（白矢頭）の信号と比較するとより低い信号を呈した。
- c : MRCP；胰頭部の囊胞性病変（白矢印）は肝囊胞（白矢頭）や胆管・胆嚢と比較してより低い信号を呈した。
- d : 拡散強調像；胰頭部の囊胞性病変（白矢印）は高信号を呈した。

a | b
c | d

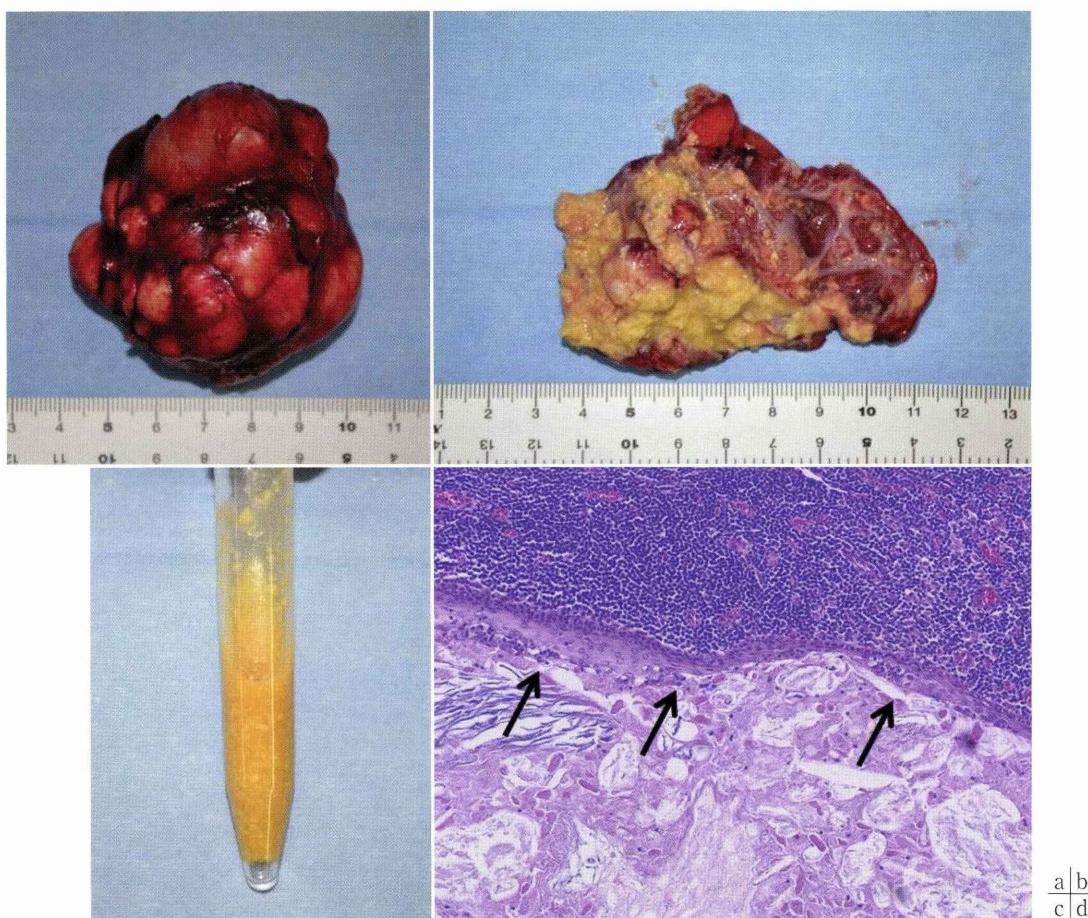


図 4

- a : 標本写真 ; 60 mm 大の境界明瞭な腫瘍性病変を認めた。表面はやや光沢があり、白色から黃色調であった。
- b : 標本写真（剖面）；囊胞は比較的厚い白色の隔壁を有し、内部には黄色のケラチン様物質が充満していた。
- c : 囊胞内容液；黄色のケラチン様物質を認めた。
- d : 病理組織学的所見；囊胞内腔は重層扁平上皮（黒矢印）で被覆されており、扁平上皮下にはリンパ球の帯状集簇を認めた（HE 染色、100 倍）。

表 1 膜 lymphoepithelial cyst の特徴

年齢・性別	中年男性に好発する。
検査所見	CA19-9 が半数以上の症例で高値となる。
形態	膜外に突出する。 單房性も多房性もある。 境界明瞭である。
超音波所見	多彩なエコー像。 内部のケラチン様物質を反映し時にモザイク状となる。
CT 所見	囊胞壁および隔壁に造影効果をもつ。 内部に充実成分を認めない。 主膜管の拡張を認めない。
MRI 所見	T1 強調像 自由水と比較してより高い信号を呈する。
	T2 強調像 自由水と比較してより低い信号を呈する。
	MRCP 胆管、胆嚢の信号と比較してより低い信号を呈する。 主膜管との交通は認めない。
	拡散強調像 高信号を呈する。
	脂肪抑制 内部の脂肪成分が多い場合には信号変化を認める。

である。そのため画像検査の果たす役割は大きい。膵 LEC の画像所見としては、US では内部のケラチン様物質により多彩な内部エコーを呈し⁹⁾、時に本症例のように多彩なエコー輝度が混在するモザイク状となる。CT では外方に発育する境界明瞭な単房性もしくは多房性の囊胞性病変として認められ、囊胞壁および隔壁に造影効果を認める⁵⁾。MRI では、脂質が多い場合には T1 強調像で高信号、脂肪抑制画像で信号抑制を呈するが、内部の脂質、ケラチン様物質の含まれる割合によりさまざまな信号パターンを呈しうる⁵⁾。この MRI の信号パターンは膵 LEC と鑑別が必要な漿液性囊胞腫瘍 (serous cystic neoplasm : SCN) や MCN, IPMN とは異なるため鑑別に有用と考える。すなわち SCN や MCN, IPMN の囊胞内容は漿液または粘液であるが、いずれも LEC と比較して粘稠度は低く、典型的な症例では T1 強調像で低信号、T2 強調像で高信号、MRCP では高信号を呈し、拡散強調像では低信号となる。これらの信号に対し膵 LEC では、内部のケラチン様物質を反映し、T1 強調像ではより高い信号に、T2 強調像ではより低い信号になり¹⁰⁾、MRCP ではより低い信号、拡散強調像ではより高い信号を呈する¹¹⁾。他の囊胞性疾患においても囊胞内部に出血が生じた場合には膵 LEC と類似した信号を呈する可能性があるが、shading (陳旧化した血腫内のヘモジデリンにより、T2 強調像において一部低信号になること。血腫が重力にしたがって沈殿し fluid level を形成することもある) の有無を評価することで鑑別は可能と考えられる。

本症例においては、US でのモザイク状エコー、膵外に突出する形態、MRI における特徴的な信号といった画像所見に加え、中年男性であること、CA19-9 高値であったことなどを総合的に評価し、膵 LEC を第一に疑うことが可能であった（表 1）。しかし CA19-9 高値に関しては膵 LEC の特徴である一方、腫瘍マーカーでもあるため、悪性疾患を否定できない一因にもなった。今回、組織学的に他の malignant potential を有する疾患との鑑別を行うことや、切除により CA19-9 の正常化¹²⁾を確認することを目的として手術を施行する方針とした。膵頭部病変であり、malignant potential をもつ疾患を第一に疑うならば、膵頭十二指腸切除術を考慮しなければならないが、膵 LEC を強く疑っていたために、切除生検としての腫瘍核出術を選択することができ、手術侵襲を低減することが可能となったと考える。

おわりに

詳細な画像検査に加え、性別や CA19-9 値などの臨床的特徴を総合的に評価することにより、術前に膵 LEC を疑うことが可能であった。完全に悪性疾患が否定できない場合には手術もやむをえないと思われるが、膵 LEC の可能性が高いと診断できれば、より侵襲の低い適切な治療法を選択すべきと考えられた。

参考文献

- 1) Luchtrath H, Scheriefers KH : Pankreaszyste unter dem Bild einer sogenannten brachio-genen Zyste. Pathologe **6** : 217-219, 1985.
- 2) Truong LD, Rangdaeng S, Jordan PH Jr : Lymphoepithelial cyst of the pancreas. Am J Surg Pathol **11** : 899-903, 1987.
- 3) 松崎一平、大久保賢治、伊藤隆徳、ほか：半年の経過で増大傾向を示した膵リンパ上皮囊胞の 1 例. 肝胆膵治療研究会誌 **7** : 36-43, 2009.
- 4) Adsay NV, Hasteh F, Cheng JD, et al. : Squamous-lined cysts of the pancreas : lymphoepithelial cysts, dermoid cysts (teratomas), and accessory-splenic epidermoid cysts. Semin Diagn Pathol **17** : 56-65, 2000.
- 5) 田邊裕貴、菅原敬文、高畠浩之、ほか：膵癌との鑑別が困難であった膵リンパ上皮囊胞の 1 例. 臨床放射線 **58** : 317-321, 2013.
- 6) Karim Z, Walker B, Lam E : Lymphoepithelial cysts of the pancreas : the use of endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration in diagnosis. Can J Gastroenterol **24** : 348-350, 2010.
- 7) Foley KG, Christian A, Roberts SA : EUS-FNA diagnosis of a pancreatic lymphoepithelial cyst : three-year imaging follow-up. JOP **13** : 681-683, 2012.
- 8) 日本消化器内視鏡学会編：消化器内視鏡ガイドライン第3版. 日本消化器内視鏡学会卒後教育委員会編, 医学書院, 170-172, 2006.
- 9) 漢野亮輔、稻垣 優、木村裕司、ほか：膵リンパ上皮囊胞の 2 例. 岡山医学会雑誌 **124** : 53-57, 2012.
- 10) Shinmura R, Gabata T, Matsui O : Lymphoepithelial cyst of the pancreas : case report with special reference to imaging-pathologic correlation. Abdom Imaging **31** : 106-109, 2006.
- 11) Nam SJ, Hwang HK, Kim H, et al. : Lymphoepithelial cysts in the pancreas : MRI of two cases with emphasis of diffusion-weighted imaging characteristics. J Magn Reson Imaging **32** : 692-696, 2010.
- 12) Ohta T, Nagakawa T, Fukushima W, et al. : Carbohydrate Antigen 19-9-Producing Lymphoepithelial Cyst of the Pancreas : A Case Report with an Immunohistochemical Study. Dig Surg **9** : 221-225, 1992.