

## lymphoepithelial cyst の 1 例

安田 武生 武本 昌子 松本 正孝 荒木 麻利子 中多 靖幸  
石川 原 山崎 満夫 中居 卓也 竹山 宜典

近畿大学医学部外科学教室

### 抄 録

症例は69歳男性。口渇を主訴に近医を受診し、慢性膵炎に伴う膵性糖尿病の疑いにて、当院紹介受診。精査の結果、膵体部主膵管に膵石の陥頓を認めるとともに、膵頭部の頭側に径50 mm 大の嚢胞性病変を認めたため、慢性膵炎、膵石症および膵嚢胞性腫瘍の診断にて膵空腸側々吻合術、腫瘍摘出術施行した。膵頭部に存在した腫瘍の病理組織学的検査結果は lymphoepithelial cyst であった。各種検査機器・検査方法の発展により偶発腫に遭遇する機会が増加している。膵臓は代表的な偶発腫の存在部位であり、時にその診断治療に難渋することもある。また、膵周囲、後腹膜より lymphoepithelial cyst が発生することが知られているが、比較的稀である。今回われわれは慢性膵炎精査中に偶然発見された lymphoepithelial cyst を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

**Key words:** 膵, lymphoepithelial cyst, 偶発腫

### 緒 言

各種検査機器・検査方法の発展により偶発腫に遭遇する機会が増加している。偶発腫は人体のどの部位にも存在しうるが特に肝臓・腎臓・副腎・膵臓は代表的な偶発腫の存在部位であり、時にその診断治療に難渋することもある。

一方、膵の lymphoepithelial cyst (以下 LEC) は膵嚢胞性疾患のなかでも比較的稀な疾患で、増大すれば圧迫症状等の出現もありうるが基本的には無症状であり、良性疾患であるため症状がなければ手術適応はないと思われる。しかし術前に確定診断を行うことは困難であり、また半数以上で CA19-9 高値を認め悪性が否定できず切除されている症例が多い。今回われわれは慢性膵炎精査中に偶発腫として発見され切除した膵 LEC の 1 例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

症例：69歳 男性。

主訴：口渇

現病歴：約10年前より高血糖を指摘されていたが、放置していた。最近になり口渇を認めるようになったため、近医を受診。精査の結果、慢性膵炎に伴う

膵性糖尿病が疑われ、精査加療目的に当院紹介となった。

既往歴：29歳虫垂炎手術 60歳痛風にて内服加療中

嗜好歴：喫煙：20~30本/day, 以前は大酒家。現在機会飲酒程度。

入院時時現症：身長174 cm, 体重68.8 kg 腹部は平坦・軟であり、腫瘤は触知しなかった。

血液検査所見：赤血球 $4.39 \times 10^6/\mu\text{l}$ , ヘモグロビン 13.7 mg/dl, ヘマトクリット41%と軽度の貧血を認めた。空腹時血糖は115 mg/dl, ALP 324 IU/l と軽度高値であった。腫瘍マーカーは CEA 3.8 ng/ml, Span-1 27 U/ml, DUPAN-2 25 U/ml と正常範囲内であったが CA19-9 は69 U/ml と軽度上昇を認めた。

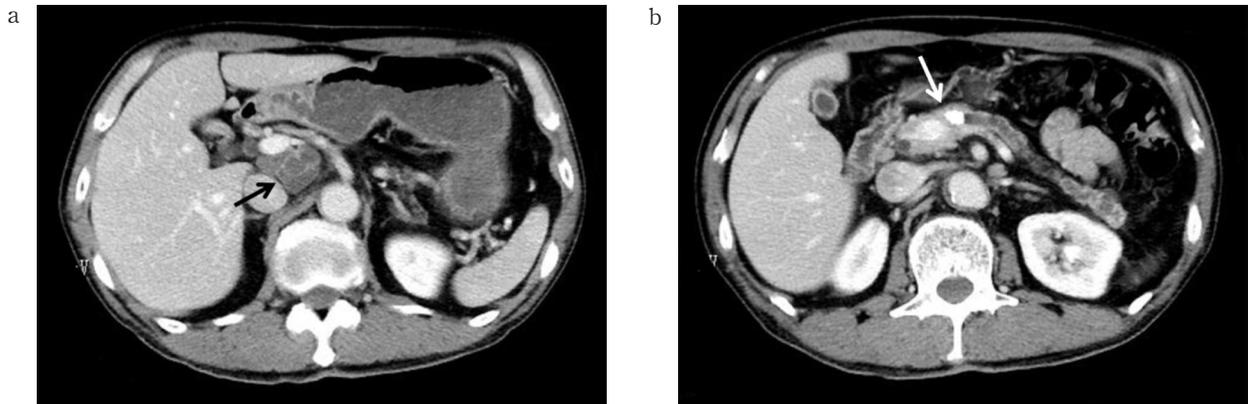
腹部造影 CT 検査所見：総肝動脈起始部背側に長径 5 cm 大の多房性嚢胞性腫瘍を認めた。嚢胞の隔壁には造影効果を認め、膵頭部に接して存在しており画像上は膵外に大きく突出した膵管内乳頭粘液性腫瘍 (以下, IPMN) が疑われた (Fig. 1 a)。また膵頭体部移行部に膵石を認め同部より末梢の主膵管の拡張および膵実質の菲薄化を認めた (Fig. 1 b)。

腹部 MRCP 検査所見：胆管の走行に異常は認めず、主膵管は CT 検査と同様に膵体部から末梢の拡

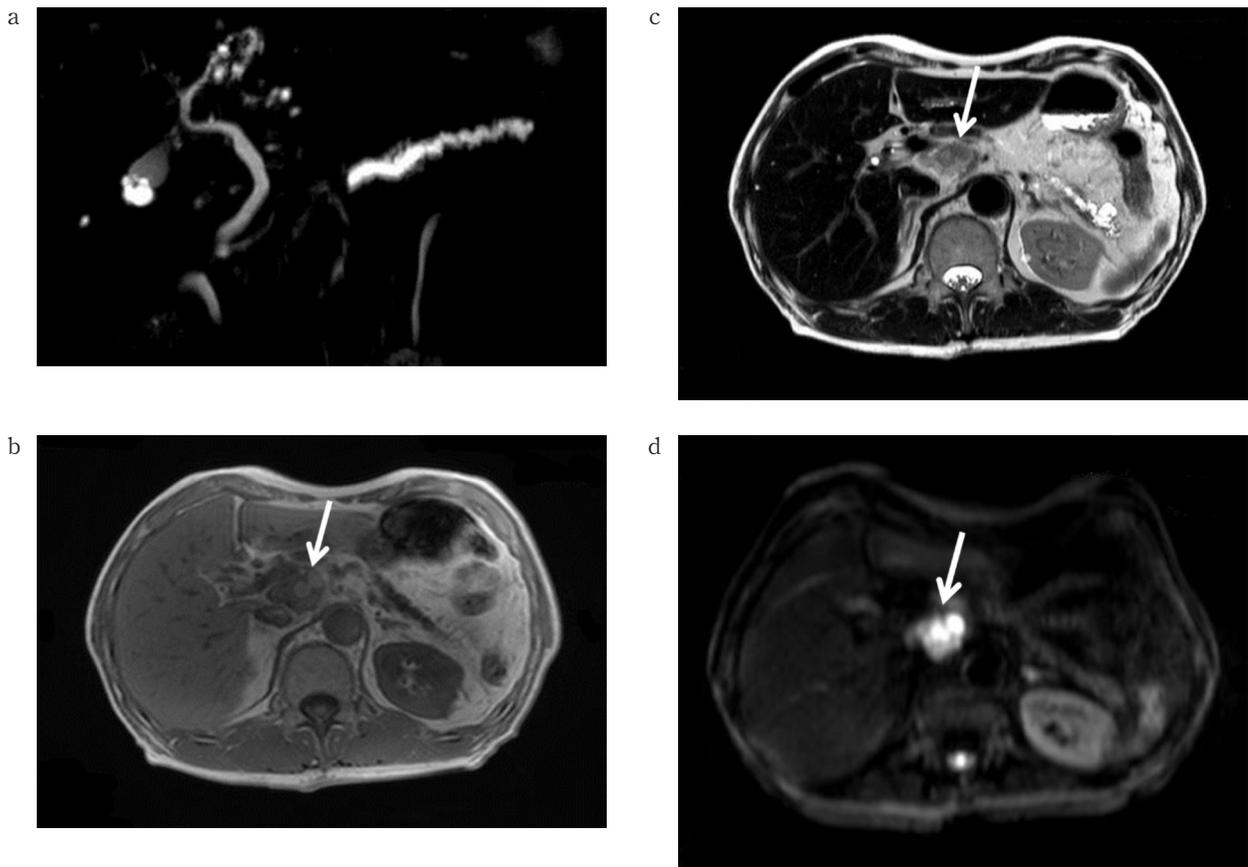
張を認めた。CT 検査で指摘された嚢胞性腫瘍は描出されなかった (Fig. 2 a)。

腹部 MRI 検査所見：嚢胞性腫瘍は T1 強調画像 (Fig. 2 b), T2 強調画像 (Fig. 2 c) とともに内部構

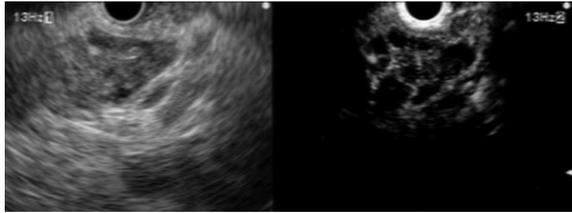
造不均一に描出されたが、拡散強調画像 (Fig. 2 d) では高信号を呈した。MRI 上は脾の嚢胞性疾患に加えリンパ管腫などの疾患も鑑別に挙げたが、拡散強調画像で高信号であったためこれらに感染・炎症合



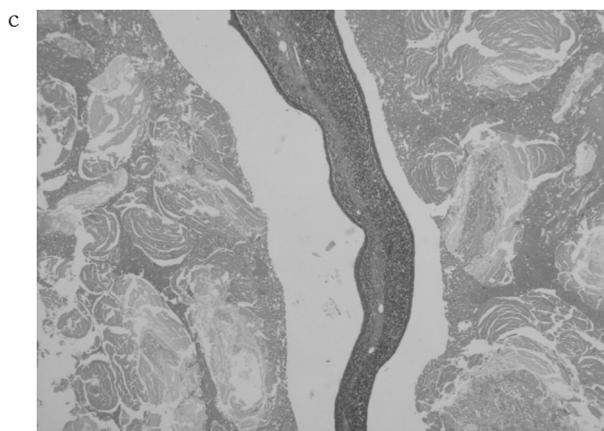
**Fig. 1** a：腹部造影 CT 検査所見：総肝動脈起始部背側に長径 5 cm 大の多房性嚢胞性腫瘍を認める (矢印)。  
b：腹部造影 CT 検査所見：膵頭体部移行部に膵石を認め (矢印)，同部より末梢の主膵管の拡張および膵実質の菲薄化を認める。



**Fig. 2** a：腹部 MRCP 検査所見：胆管の走行に異常は認めず，主膵管は CT と同様に膵体部から末梢の拡張を認める。CT で指摘された嚢胞性腫瘍は描出されていない。  
b：腹部 MRI 検査所見 (T1 強調画像)：内部不均一な腫瘍として描出される (矢印)。  
c：腹部 MRI 検査所見 (T2 強調画像)：同様に内部不均一な腫瘍として描出される (矢印)。  
d：腹部 MRI 検査所見 (拡散強調画像)：腫瘍は高信号を呈しする (矢印)。



**Fig. 3** 超音波内視鏡検査：内部不均一な多房性腫瘍として描出され(左)，ソナゾイドによる造影により隔壁は造影効果を認めるが，内部は造影効果は認めない(右)。



併している可能性も示唆された。

超音波内視鏡検査：内部不均一な多房性囊胞性腫瘍として描出され，エコー輝度は周囲リンパ節組織と同等であった。ソナゾイドによる造影により隔壁は造影効果を認めたが，内部は造影効果を認めなかった (Fig. 3)。

以上より脾石症による慢性脾炎および脾囊胞性腫瘍の診断にて開腹手術を行った。開腹所見では脾は脾頸部より中枢側の組織は正常脾であり，脾石嵌頓部より末梢側の脾は硬化・菲薄化していた。囊胞性腫瘍は脾や周囲リンパ節と連続性はなく柔らかく表面平滑な腫瘍として存在しており，周囲への浸潤傾向はなかった。脾石嵌頓に対しては脾石摘出・脾空腸側々吻合術を行い，囊胞性腫瘍は腫瘍摘出術を行った。

切除標本所見：腫瘍は多房性であり，被膜は薄く内部を透視できる状態であった (Fig. 4 a)。内部には厚い隔壁も存在しており，その内腔は白色軟な1-2 mm 大のオカラ状の物質やチーズ状の物質が充満していた (Fig. 4 b)。石灰化成分や毛髪成分などは認めなかった。

病理組織検査所見：囊胞は重層扁平上皮に囲まれており，内容は角質やタンパク質様好酸性物質であった。上皮下には密なリンパ組織が存在しており LEC と診断された (Fig. 4 c)。

術後は順調に経過し術後6日目に退院された。現在術後約2年経過しているが再発等の異常は認めず，外来通院中である。

## 考 察

脾臓は偶発腫の代表的な発見部位であり，時にその診断治療に難渋することもある。2010年に J Am Coll Radiol 発表された Managing Incidental Findings on Abdominal CT: White Paper of the ACR Incidental Findings Committee<sup>1</sup> でもガイドラインという位置づけまで確定することは難しくコンセンサスという形で診断治療の道筋を示したのみであった。この報告の概要を Fig. 5にまとめる。自験例で

**Fig. 4** a：標本所見：腫瘍は多房性であり，被膜は薄く内部を透視できる。  
b：標本所見：断面では内部には厚い隔壁が存在しており，その内腔は白色軟な1-2 mm 大のオカラ状の物質や粘土状の物質が充満している。  
c：病理検査所見：囊胞は重層扁平上皮に囲まれており，内容は角質やタンパク質様好酸性物質である。上皮下には密なリンパ組織が存在している (HE 染色，40倍)。

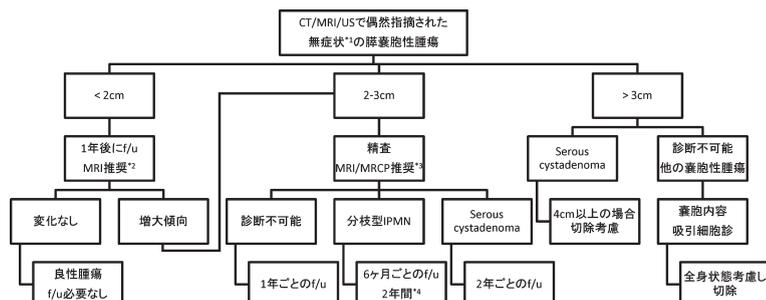


Fig. 5 偶発腫診療コンセンサス：Managing Incidental Findings on Abdominal CT: White Paper of the ACR Incidental Findings Committee より改編

\*1: 高アマラーゼ血症・糖尿病発症・心窩部痛・体重減少・脂肪性下痢・黄疸を除く

\*2: 若年者では期間短縮を考慮 T2強調MRIを推奨

\*3: 膵に焦点を絞ったMRI/MRCPを推奨

\*4: 2年経過後は1年ごとにf/u 増大傾向や悪性化疑われる変化あれば切除考慮

IPMN: intraductal papillary mucinous neoplasm

f/u: follow-up

は最終診断は lymphoepithelial cyst であり、膵原発の腫瘍ではなかったが術前画像検査では膵に腫瘍は接しており、膵原発の IPMN が疑われた。本コンセンサスに則ると長径 5 cm を超え、嚢胞を穿刺吸引の後、切除という取り扱いになる。本コンセンサスに記載されている膵の嚢胞性腫瘍の術前生検についてはまだ議論の残るところではあり、加えて2012年に発表された膵管内乳頭状粘液腫瘍および粘液性嚢胞腫瘍の International Consensus Guidelines<sup>2</sup> との整合性の問題もあり、膵の偶発腫に関しては更なる詳細な検討を要すると思われるが、自験例のように他疾患の手術（慢性膵炎に対するドレナージ術）の際の同時摘出であれば十分手術適応はあると考えられた。

一方、膵の LEC は膵嚢胞性疾患でも比較的稀な疾患であり、1985年に Luchtrath ら<sup>3</sup> により膵の腮弓嚢胞類似疾患として初めて報告され、1987年に Truong ら<sup>4</sup> が LEC と呼ぶことを提唱した。その組織起源としては (1) 胎生期の迷入鰓裂からの発生、(2) 膵周囲リンパ節で異所性膵の膵管上皮の扁平上皮化生、(3) 膵管の一部の閉塞による膵周囲リンパ組織内への拡張と扁平上皮化生、(4) 膵管組織由来の真性膵嚢胞、などの説があるが一定の見解は得られていない<sup>5</sup>。大多数の症例では膵から突出した状態で存在しており、膵実質と密に連続するもの、茎状の間質を介して連続するもの、傍膵リンパ節にみられ膵実質との関連を認めないものなどが報告されている。加茂田らは本邦報告72例をまとめており<sup>6</sup>、この報告によれば男性症例が90%を占め、平均年齢は58.3歳、好発部位はなく、多房性と単房性は5:2、平均腫瘍径が5 cm であった。初発症状は腹痛が多いが、約半数は無症状であり、検診などで偶発腫として発見される。有症状のものの中では、上腹部痛、上腹部不快感、などが多い。血液検査では

特異的なものはないが、CA19-9 は半数の症例で上昇を認め、更にその半数では100 IU/l まで上昇を認めている。Yamaguchi らは CA19-9 が上昇する機序の一つとして、膵管内圧の上昇が管腔側の膵管上皮細胞形質膜に存在する CA19-9 の過剰な逸脱と血中への逆流をもたらし上昇すると推測している<sup>7</sup> が、膵管内圧の上昇は腹痛として自覚されるであろうことから、機序としてはありうるものと考えられる。自験例は平均年齢より高齢ではあったがその他の特徴としては概ね上記と合致する症例であった。

画像診断の特徴としてはいずれの画像検査でも多房性・単房性の嚢胞性腫瘍として描出される。造影 CT で被膜隔壁は造影効果を認め、内容は造影効果を受けない。MRI では通常の T1 強調画像や T2 強調画像に加え拡散強調画像で高信号に描出される<sup>8</sup>。ERP や MRCP で嚢胞と主膵管の交通は認めない。臨床上鑑別が必要なものとしては、粘液性嚢胞腫瘍、分枝型膵管内乳頭状粘液腫瘍、類上皮腫などが挙げられるが、いまだ正確な鑑別は不可能である。最近では LEC の術前診断に際し EUS の有用性の報告もあるが多くの FNA との組み合わせにおいてである<sup>9-13</sup>。前述したように膵の嚢胞性腫瘍に関しては生検や FNA の施行についてまだ議論の残る部分はある<sup>14</sup> が、全体として施行を是認する報告が増加しており、加茂田らの本邦報告の検討においても術前診断し得た LEC5 症例中 4 例<sup>10-13</sup> は穿刺吸引細胞診にて診断しており今後更に重要性を増していくと考えられる。

治療としては、術前診断が困難であり悪性腫瘍も否定できず、外科切除が選択されることが多いが、術前に LEC と確定診断できれば経過観察でもよいと考えられる。切除範囲は腫瘍と膵との関係で決定されるが大多数で腫瘍切除・摘出が選択されている。自験例は併存する慢性膵炎に対する加療の際に腫瘍

摘出を施行した。

現在までに報告された LEC のうち、膵炎が背景に存在したとする報告は 2 例のみである (医学中央雑誌, PubMed で 1991 年から 2011 年までの間で「慢性膵炎」「chronic pancreatitis」「lymphoepithelial cyst」を key word に会議録を除いて検索)。Adsay らの報告<sup>15</sup> は既往に膵炎が存在するとの記載のみで急性膵炎後なのか慢性膵炎であったのかは不明である。松本らの報告<sup>16</sup> は慢性膵炎経過中におそらく炎症波及にて増大傾向を認めた LEC を報告しているが、膵炎そのものと LEC の関連についてはおそらく無関係であろうとしている。LEC の組織起源がいまだ詳細不明である以上、前述した組織起源の可能性の(3)に当たる可能性、すなわち慢性膵炎に伴う炎症により膵管が一部閉塞し、膵周囲リンパ組織内へ拡張するとともに扁平上皮化生がおこった可能性が考えられるが、証明する方法はなく、あくまで推測である。今後症例が蓄積され起源解明につながる知見が得られる可能性を期待したい。

## 結 語

今回われわれは慢性膵炎精査中に偶発腫として切除された膵 LEC の 1 例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

## 文 献

- Lincoln L, et al. (2010) Managing Incidental Findings on Abdominal CT: White Paper of the ACR Incidental Findings Committee. *J Am Coll Radiol* 7: 754-773
- Tanaka M, et al. (2006) International Consensus Guidelines for Management of Intraductal Papillary Mucinous Neoplasms and Mucinous Cystic Neoplasms of the Pancreas *Pancreatology* 6: 17-32
- Luchtrath H, Schriefer KH (1985) Pancreaszyste unter dem Bild einer sogenannten brachio—genten Zyste. *Pathologe* 6: 217-219
- Truong LD, et al. (1995) A comprehensive characterization of lymphoepithelial cyst associated with the pancreas. *Am J Surg* 170: 27-32
- 橋本雅司ら (2002) 腹腔鏡下膵体尾脾切除術を施行した膵 Lymphoepithelial Cyst の 1 例. *日鏡外会誌* 8: 510-513
- 加茂田泰久ら (2007) 術前診断しえた膵 lymphoepithelial cyst の 1 例. *膵臓* 22: 123-129
- Yamaguchi T, et al. (2008) Lym-phoepithelial cyst of the pancreas associated with elevated CA 19-9 levels. *J Hepatobiliary Pancreat Surg* 15: 652-654
- Nam SJ, et al. (2010) Lymphoepithelial Cysts in the Pancreas: MRI of Two Cases With Emphasis of Diffusion-Weighted Imaging Characteristics. *J. Magn. Reson. Imaging* 32: 692-696
- Karim Z, Walker B, Lam EC. (2010) Lymphoepithelial cysts of the pancreas: The use of endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration in diagnosis. *Can J Gastroenterol* 24: 348-350
- Bolis GB, et al. (1998) Lymphoepithelial cyst of the pancreas. Report of a case diagnosed by fine needle aspiration biopsy. *Acta Cytol* 42: 384-386
- Liu J, et al. (1999) Cytologic features of lymphoepithelial cyst of the pancreas: two preoperatively diagnosed cases based on fine—needle aspirarion. *Diagn Cytopathol* 21: 346-350
- Centeno BA, Stockwell JW, Lewandrowski JW. (1999) Cyst fluid cytology and chemical features in a case of lymphoepithelial cyst of the pancreas: A rare and difficult preoperative diagnosis. *Diagn Cytopathol* 21: 328-330
- 村上晶彦ら (2001) 術前診断が可能であった lymphoepithelial cyst of the pancreas の一例. *膵臓* 17: 447
- 菅野 敦ら (2005) 膵 lymphoepithelial cyst の 2 例. *日消誌* 102: 612-618
- Adsay NV, et al. (2002) Lymphoepithelial cysts of the pancreas: a report of 12 cases and a review of the literature. *Mod Pathol* 15: 492-501
- 松本祐介, 甲斐恭平, 山田隆年, 中島 明, 佐藤四三 (2008) 慢性膵炎にみられた膵リンパ上皮嚢胞 (Lymphoepithelial cyst) の 1 例. *日臨外会誌* 69: 1786-1790