

〈症例報告〉

非定型的形態を示した小型の膵 Solid pseudopapillary neoplasm (SPN) の1例

上野 太輔¹⁾, 松本 英男¹⁾, 吉田 浩司²⁾, 秋山 隆³⁾

1) 川崎医科大学消化器外科学, 〒701-0192 倉敷市松島577,

2) 同 肝胆膵内科学, 3) 同 病理学1

抄録 症例は37歳, 男性. 直腸癌の術前精査のために行った腹部造影 Computed Tomography (CT) 検査で, 膵尾部に径15mm の遅延性濃染を示す充実性腫瘍を認めた. 腹部エコー検査で辺縁不明瞭であったため, 腫瘍は被膜を形成していないと思われた. Fluorodeoxyglucose-Positron Emission Tomography / CT では hot spot として描出されたため, 膵管癌が疑われた. 診断確定のために行った超音波内視鏡ガイド下穿刺吸引組織診では Solid Pseudopapillary Neoplasm (SPN) であったため, 膵温存膵尾部切除術を施行した. 術後の病理学的検査所見では, 腫瘍は被膜を有さず, 周囲膵組織への浸潤もなく, 悪性所見は認めなかった. 被膜を有さない小型な非典型例の SPN を経験したので, 若干の文献的考察を含めて報告する.

doi:10.11482/KMJ-J42(2)143 (平成28年8月25日受理)

キーワード: Solid pseudopapillary neoplasm, EUS-FNA, 膵

緒言

膵臓の Solid Pseudopapillary Neoplasm (SPN) は, 若年女性に発症する被膜を有する比較的大きな腫瘍として発見されることが多いが, 腫瘍の発育過程における早期の臨床像は明らかでない. 今回, 他疾患で精査中の30代男性に発見された15mm 大と比較的小型な被膜を有しない SPN を経験したので, 若干の文献的考察を含めて報告する.

症例

患者: 37歳, 男性

主訴: 血便

現病歴: 血便を自覚し近医受診したところ, 下部消化管内視鏡検査で直腸に半周性の1型の大

腸癌を指摘され, 手術目的に当科を紹介された.

既往歴: 特記事項なし

家族歴: 祖父: 肺がん, 父: 大腸癌

入院時現症: 身長 180.6cm, 体重 63.2kg, 腹部は平坦, 軟で圧痛なし.

その他特記事項なし.

検査所見: 血算, 血液生化学検査, 腫瘍マーカーはいずれも正常範囲内であった.

画像所見: 腹部 Ultrasound (US) 検査: 膵体尾部に径約15mm大, 境界不明瞭で辺縁不整な低エコー域認めた (図1a). 造影にて軽度の造影効果を認め, 主膵管の拡張は伴っていなかった. 腹部 Computed Tomography (CT) 検査: 膵体部に遅延性濃染を示す10mm 大の充実性の腫瘍を認めた (図1b, c). 主膵管の拡張は認めず,

別刷請求先

上野太輔

〒701-0192 倉敷市松島577

川崎医科大学消化器外科学

電話: 086 (462) 1111

ファックス: 086 (464) 1111

Eメール: daisuke0111@hotmail.co.jp

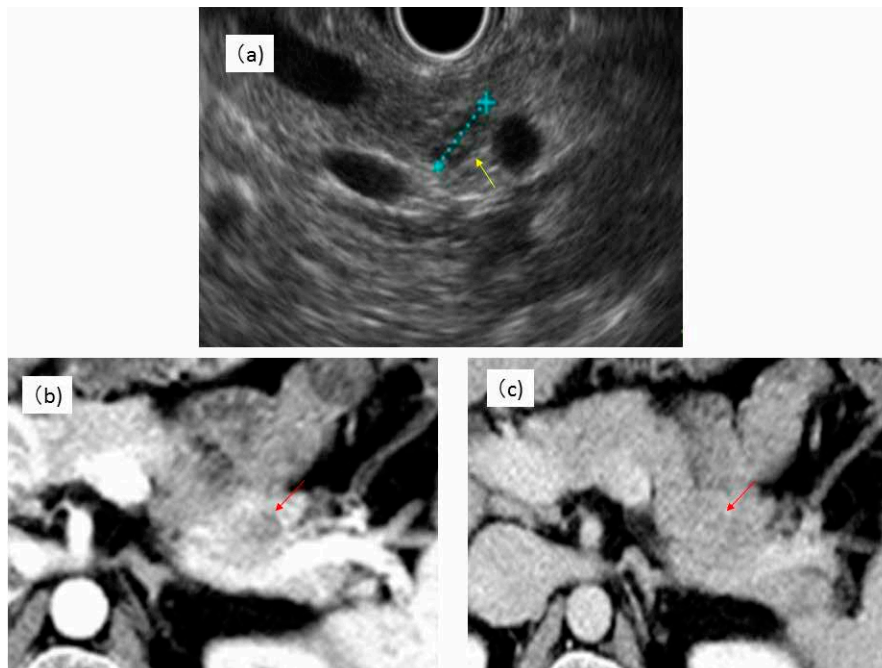


図1 腹部超音波検査 (a), 腹部造影CT検査 (b, c)

(a) 膵体尾部に径約15mm大, 境界不明瞭で辺縁不整な低エコー域認めた (矢印).

(b) (c) 膵体部に遅延性濃染を示す10mm大の充実性の腫瘍を認めた (矢印).

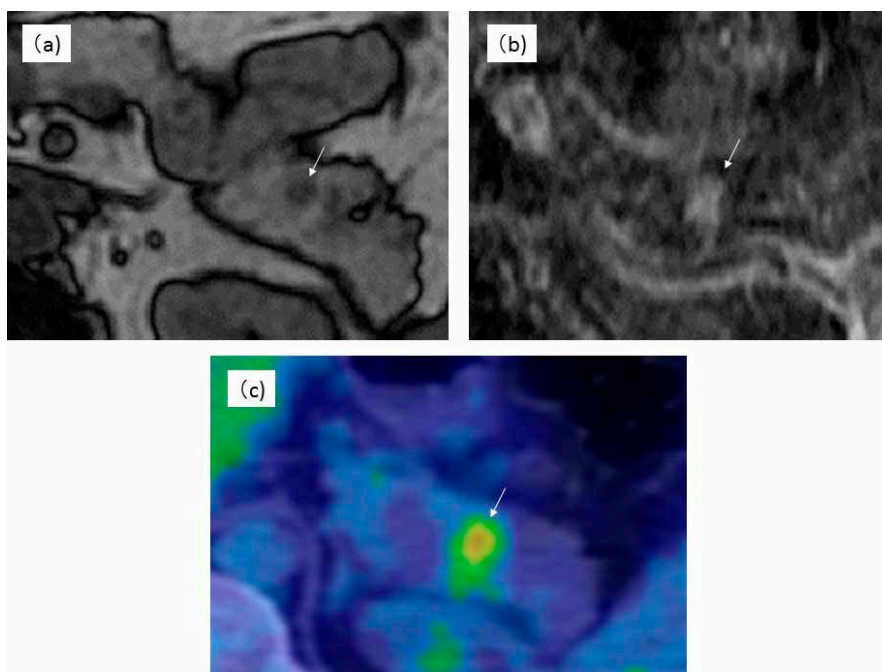


図2 腹部MRI検査 (a, b), FDG-PET/CT検査 (c)

(a) (b) 形状は類円形, 境界は比較的明瞭・内部均一な病変であり T1WI (a) で低信号, T2WI (b) で高信号を呈した (矢印).

(c) 膵体部に hot spot (SUV max=5.0/5.0) を認めた (矢印).

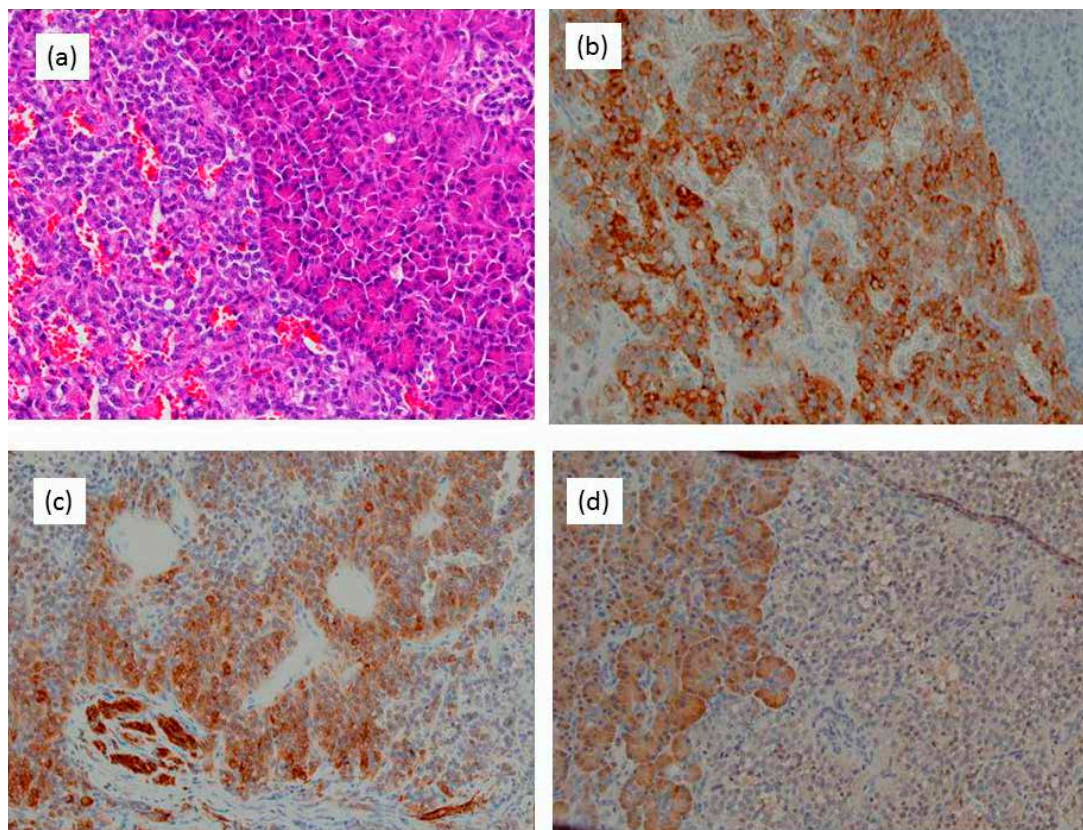


図3 EUS-FNAで採取した組織の病理所見

- (a) 左側が膵正常細胞, 右側が腫瘍細胞. 腫瘍細胞は血管周囲性に配列し, 偽乳頭状パターンを認めた (H.E.×10).
 (b) synaptophysin+/-
 (c) CD10+/-
 (d) amylase- (×10)

明らかなリンパ節腫大や腹水貯留は認めなかった. その他肝臓など遠隔転移を示唆する所見はなかった.

腹部 Magnetic Resonance Imaging 検査: 膵体部に遷延性の造影効果を呈する10mm大の充実性の腫瘍を認めた. 形状は類円形, 境界は比較的明瞭・内部均一な病変であり T1WI で低信号, T2WI で高信号を呈した. Magnetic Resonance Cholangiopancreatography (MRCP) では主膵管の拡張や閉塞は認めなかった (図2 a, b).

Fluorodeoxyglucose-Positron Emission Tomography (PET) / CT 検査: 膵体部に hot spot (SUV max=5.0/5.0) を認めた. リンパ節転移や遠隔転移を示唆する所見は認めなかった (図

2 c).

画像診断の結果より, 特定の膵腫瘍の診断を確定することはできなかった. また, PET も陽性であり膵管癌も否定できなかったため, 超音波内視鏡ガイド (Endoscopic Ultrasound: EUS) 下に穿刺吸引組織診 (Fine Needle Aspiration: FNA) を施行した. 生検組織の組織学的所見は, 横紋筋様な細胞質からなる異型細胞が血管周囲性に配列し, 偽乳頭状パターンを呈していた (図3 a). 免疫染色では insulin-, $\alpha 1$ -antitrypsin++, NSE+, synaptophysin+/-, CD10+/-, AE1/AE3-, CAM2.5-, desmin-, amylase-, chromogranin- であった (図3 b, c, d). また, 細胞分裂像は認められず MIB-1 index も

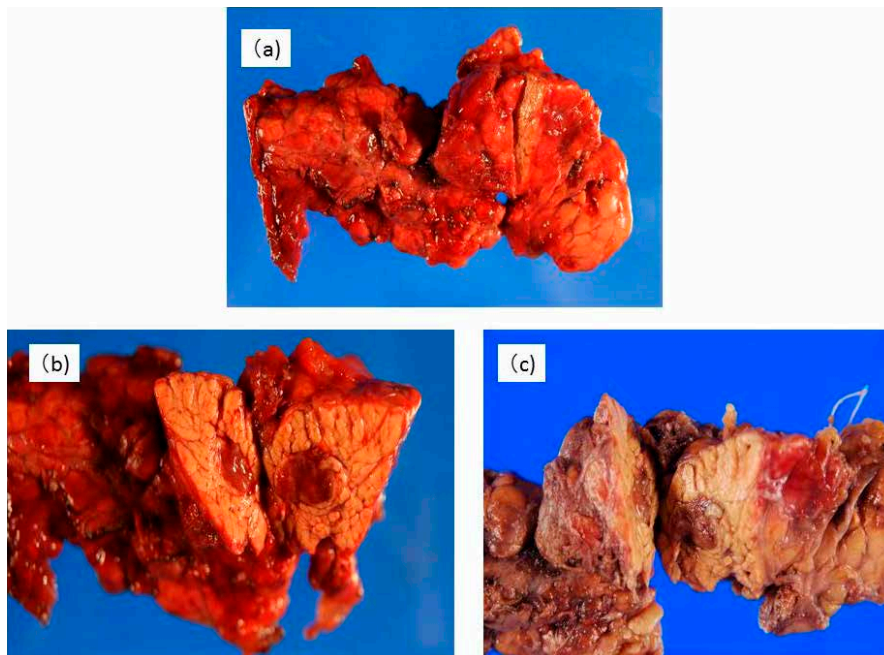


図4 切除標本肉眼所見

(a) 摘出標本

(b) 腫瘍部剖面

(c) 固定後の標本である。臍体部に14×10mmの境界明瞭な結節性病変を認めた。被膜や囊胞成分を有さない、赤褐色の充実性腫瘍であった。

低く1%程度であった。

以上より直腸癌 (T2N0M0 c Stage I), SPN と診断し、腹腔鏡下低位前方切除、脾温存臍体尾部切除術 (Warshaw 法) を施行した¹⁾。

摘出標本 (図4): 肉眼的所見では、臍体部に14×10mmの境界明瞭な結節性病変を認めた。被膜や囊胞成分を有さない、赤褐色の充実性腫瘍であった。組織像はEUS-FNAと同様で、横紋筋様な細胞質からなる異型細胞が血管周囲性に配列し、偽乳頭状パターンを呈しており、硝子球も認められた。免疫染色では、CD10+, Amylase-, Synaptophysin+, Chromogranin A- でありMIB-1 indexは0.5%であった。以上よりSPNと診断された。断端は陰性で、リンパ節転移は認めなかった。

また、直腸癌はRa, 25×33mm, tub1, sm, ly1, v0, N0, M0, pStageIと診断された。

考 察

30代男性の大腸癌術前精査中に発見されたSPNの一症例を報告した。SPN発見時の年齢は男女ともに30歳前後であることが多く²⁾、大きさとしては6～8cm程度のことが多い^{2,3)}。Papavramidisらによる718例の報告では、SPN全体で直径5cm以下のSPNは約17%程度³⁾であった。また、今回検索しえた論文12編中、1.5cm以下のSPNを報告している論文は4編のみで、5mmが最小径であった。発見時の自覚症状としては、腹痛が44.7% (558/1228)、腹部腫瘍が26.7% (328/1228)、無症状が20.8% (255/1228)であった (表1)。本症例では小さい時期に発見されたため自覚症状の出現は認められなかったと思われる。

術前画像診断では一般的にCT及びMRIで、出血・囊胞変性に基づき明らかな増強効果を示さない囊胞成分と、増強効果の漸増する充実成分や石灰化成分が混在しているが⁴⁾、本症例は

CT, MRI で造影効果を伴うものの内部は均一であった。

一般的に, 早期に発見された SPN には嚢胞変性などの所見を認めず, 時間経過とともに出血, 壊死, 嚢胞変性, 石灰化などの変化が起これると考えられている⁵⁾. 今回も15mm と小さな状態で発見されたため, 出血・壊死・隔壁・嚢胞変性といった定形的な形態をとらなかったと考察される。

典型例であれば, SPN の形態学的特徴を画像診断でとらえるためには CT や超音波検査が有用であるが⁴⁾, 今回のように小型で肉眼的な嚢胞変性を伴わない SPN 例では, CT や超音波検査での診断は困難である⁴⁾. また, FDG-PET/CT では, 腫瘍部位に異常集積を認める報告が散見されるが^{6, 7)}, 本症例でも FDG-PET/CT で SUV max 5.0 と hot spot を認めたため, 画像診断のみでは膵管癌との鑑別が困難であった. 本症例では, EUS-FNA により術前に診断が確定したが, EUS-FNA による診断の感度・特異度は94%, 100% という報告もあり信頼性は高い^{8, 9)}.

SPN が悪性である可能性は約15%と言われているが, 病理組織像での良悪性の診断は困難である¹⁰⁻¹²⁾. 直径6.0cm 以上や膵尾部に位置する場合は悪性を, 多形成や散在性の石灰化を伴う場合や内容成分がほぼ solid な場合は良性を示唆するとされている¹³⁾. 悪性化は19.5% (104/532), 転移 (直接浸潤も含む) は約9.9% (125/1259), 再発は約4.3% (54/1258), 死亡例は約2.3% (28/1226) であった (表2). 本症例は腫瘍径が1.5cm であり, 組織学的な悪性像も認めておらず, 術後再発の可能性は低いと思われる。

結 語

我々は, 男性大腸癌患者の術前検査中に発見され, EUS-FNA で術前に確定診断がついた小型の SPN を経験した. 小型の SPN は非定形的な形態を取ることが多く, 画像診断のみでは術前診断が困難であるが, EUS-FNA を行えば術前診断も可能であると思われた。

表1 Solid Pseudopapillary Neoplasm の報告一覧

	数	腹痛	背部痛	腹満	偶然 (無症状)	消化管 閉塞	体重 減少	悪心	黄疸	腫瘍	肝腫大
沖野ら 1997 [1]	1									1	
吉岡ら 2001 [5]	308	123			72					68	
Martin RC ら 2002 [13]	24	14			7						
Cantisani V ら 2003 [10]	19	15		2	2						
Chen ら 2004 [12]	1	1								1	1
Papavramidis ら 2005 [3]	643	299		25	100		6	25	7	224	
Tipton SG ら 2006 [4]	14	9		4		2		1	1		
Sato M ら 2006 [6]	2				2						
Yu CC ら 2007 [14]	26	10			5				2	5	
de Castro SM ら 2007 [15]	12	8									
Machado MC ら 2008 [16]	34	25			7		6	11			
Lee SE ら 2008 [17]	62	21			18					16	
Yin Q ら 2012 [18]	82	33	16		42		11			13	
総 数	1,228	558	16	31	255	2	23	37	10	328	1

表2 Solid Pseudopapillary Neoplasm の報告一覧②

	数	年齢 (平均)	性別 (男:女)	腫瘍部位 頭部/体 尾部(例)	悪性 (例)	大きさ (cm) [平均]	手術方法 PD:DP:E:Others (例)	遠隔転移 (例)	死亡例 (例)	再発例 (例)	合併症例 (例)	観察期間 (月) [平均]
吉岡ら 2001 [5]	308	7-79 (29.9)	41:267	114:194 (a)	54	1.6-24 [7.5]	65:153:80:10	15 (浸潤含む)	4	16	-	-
Martin RC ら 2001 [13]	24	12-79 (39)	4:20	8:16	-	1-20 [8]	7:11:0:0	4	1	1	-	96
Cantisani V ら 2003 [10]	19	14-74 (30)	0:19	8:11	-	(d)	8:10:0:0	0	-	-	-	-
Papavramidis ら 2005 [3]	718	2-85 (21.9)	1.9:78	255:427 (b)	-	0.5-34.5 [6.08]	142:221:26:133	97 (浸潤含む)	21	31	-	-
Tipton SG ら 2006 [4]	14	15-57 (30)	1:13	-	-	4-16 [7]	3:9:0:0	2	1	1	7	3-320 [87.6]
de Castro SM ら 2007 [15]	12	13-55 (21)	0:12	5:7	1	3-16 [6.9]	5:6:0:0	1	0	-	1	24-151.2 [45.6]
Goh BK ら 2007 [19]	16	14-53 (30)	1:15	3:13	9	5-24 [9.5]	3:13:0:0	1	0	0	5	3-186 (43)
Yu CC ら 2007 [14]	26	13-57 (23)	1:25	11:15	9	3.8-15 [7.5]	8:7:6:3	2	1	-	-	10-236.8 (66)
Machado MC ら 2008 [16]	34	10-72 (23)	7:27	14:20	-	1.5-15 [7]	11:15:3:0	0	0	2	13	3-170 [84]
Lee SE ら 2008 [17]	62	8-63 (36)	1:11.4	19:43	9	1.5-14 [6.5]	18:38:0:2	1	0	2	19	5.1-240.4 [47.5]
Lee JH ら 2008 [20]	26	13-59 (33)	3:23	9:17	8	[5.1]	11:14:0:0	2	-	-	-	-
Yin Q ら 2012 [8]	82	11-65 (33.1)	17:65	37:45 (c)	14	1.6-20 [6.0]	55:23:4:0	-	-	1	0	-
	1,341	-	-	-	104		336:520:119:148	125	28	54	45	-

PD: 膵頭十二指腸切除、DP: 膵体尾部切除、E: 核出術、Others: その他

(a) 頭部 110例, 頭部-体部 4例, 体部 65例, 体部-尾部 42例, 尾部 87例

(b) 頭部 234例, 頸部 7例, 頭部-体部 21例, 体部 102例, 体部-尾部 71例, 尾部 247例, 膵外 7例

(c) 頭部 29例, 頭部-頸部 8例, 頸部 1例, 頸部-体部 3例, 体部 15例, 体部-尾部 6例, 尾部 17例

(d) $1.9 \times 1.9 - 13 \times 22$ (9.4×6.8)

引用文献

- Warshaw AL: Distal pancreatectomy with preservation of the spleen. *J Hepatobiliary Pancreat Sci* 17: 808-812, 2010
- 沖野秀宣, 上田祐滋, 豊田清一: 膵 solid and cystic tumor の 1 例. *日臨外会誌* 58: 196-201, 1997
- Papavramidis T, Papavramidis S: Solid pseudopapillary tumors of the pancreas: review of 718 patients reported in English literature. *J Am Coll Surg* 200: 965-972, 2005
- Tipton SG, Smyrk TC, Sarr MG, Thompson GB: Malignant potential of solid pseudopapillary neoplasia of the pancreas. *Br J Surg* 93: 733-737, 2006
- 吉岡正智, 江上格, 前田昭太郎, 片山博徳, 松田健, 内田英二, 秋丸琥甫, 田尻孝, 田中宣威, 恩田昌彦: 膵 Solid-Pseudopapillary Tumor の臨床病理学的特徴と外科的治療-本邦報告302例と自験6例について-. *胆と膵* 22: 45-52, 2001
- Sato M, Takasaka I, Okumura T, Shioyama Y, Kawasaki H, Mise Y, Asato Y, Yoshimi F, Imura J, Nakajima K: High F-18 fluorodeoxyglucose accumulation in solid pseudo-papillary tumors of the pancreas. *Ann Nucl Med* 20: 431-436, 2006
- Lee JK, Tyan YS: Detection of a solid pseudopapillary tumor of the pancreas with F-18 FDG positron emission tomography. *Clin Nucl Med* 30: 187-188, 2005
- 古畑彩子, 白波瀬浩幸, 白井孝夫, 平田勝啓, 吉澤明彦, 羽賀博典, 中泉明彦: 膵腫瘍に対する超音波内視鏡下穿刺吸引細胞診におけるベッドサイド迅速細胞診の有用性. *臨病理* 60: 429-434, 2012
- Jani N, Bani Hani M, Schulick RD, Hruban RH,

- Cunningham SC: Diagnosis and management of cystic lesions of the pancreas. *Diagn Ther Endosc* (Epub: 2011.8.22), doi:10.1155/2011/478913 (e-pub on ahead).
- 10) Cantisani V, Mortele KJ, Levy A, Glickman JN, Ricci P, Passariello R, Ros PR, Silverman SG: MR imaging features of solid pseudopapillary tumor of the pancreas in adult and pediatric patients. *AJR Am J Roentgenol* 181: 395-401, 2003
 - 11) Mao C, Guvendi M, Domenico DR, Kim K, Thomford NR, Howard JM: Papillary cystic and solid tumors of the pancreas: a pancreatic embryonic tumor? Studies of three cases and cumulative review of the world's literature. *Surgery* 118: 821-828, 1995
 - 12) Chen C, Jing W, Gulati P, Vargas H, French SW: Melanocytic differentiation in solid pseudopapillary tumor of the pancreas. *J Gastroenterol* 39: 579-583, 2004
 - 13) Martin RC, Klimstra DS, Brennan MF, Conlon KC: Solid-pseudopapillary tumor of the pancreas: a surgical enigma? *Ann Surg Oncol* 9: 35-40, 2002
 - 14) Yu CC, Tseng JH, Yeh CN, Hwang TL, Jan YY: Clinicopathological study of solid and pseudopapillary tumor of pancreas: emphasis on magnetic resonance imaging findings. *World J Gastroenterol* 13: 1811-1815, 2007
 - 15) de Castro SM, Singhal D, Aronson DC, Busch OR, van Gulik TM, Obertop H, Gouma DJ: Management of solid-pseudopapillary neoplasms of the pancreas: a comparison with standard pancreatic neoplasms. *World J Surg* 31: 1130-1135, 2007
 - 16) Machado MC, Machado MA, Bacchella T, Jukemura J, Almeida JL, Cunha JE: Solid pseudopapillary neoplasm of the pancreas: distinct patterns of onset, diagnosis and prognosis for male versus female patients. *Surgery* 143: 29-34, 2008
 - 17) Lee SE, Jang JY, Hwang DW, Park KW, Kim SW: Clinical features and outcome of solid pseudopapillary neoplasm: differences between adults and children. *Arch Surg* 143: 1218-1221, 2008
 - 18) Yin Q, Wang M, Wang C, Wu Z, Yuan F, Chen K, Tang Y, Zhao X, Miao F: Differentiation between benign and malignant solid pseudopapillary tumor of the pancreas by MDCT. *Eur J Radiol* 81: 3010-3018, 2012
 - 19) Goh BK, Tan YM, Cheow PC, Chung AY, Chow PK, Wong WK, Ooi LL: Solid pseudopapillary neoplasms of the pancreas: an updated experience. *J Surg Oncol* 95: 640-644, 2007
 - 20) Lee JH, Yu JS, Kim H, Kim JK, Kim TH, Kim KW, Park MS, Kim JH, Kim YB, Park C: Solid pseudopapillary carcinoma of the pancreas: differentiation from benign solid pseudopapillary tumour using CT and MRI. *Clin Radiol* 63: 1006-1014, 2008

〈Case Report〉

A case of small solid pseudopapillary neoplasm with atypical appearance

Daisuke UENO¹⁾, Hideo MATSUMOTO¹⁾, Koji YOSHIDA²⁾,
Takashi AKIYAMA³⁾

*1) Department of Digestive Surgery, 2) Department of Hepatology and Pancreatology, 3) Department of Pathology I,
Kawasaki Medical School, 577 Matsushima, Kurashiki, 701-0192, Japan*

ABSTRACT A 37-year-old man was admitted to the hospital because of rectal cancer. Delayed enhanced Computed Tomography (CT) images showed a high density tumor with a diameter of 15mm in the pancreatic tail. The tumor did not form a capsule and its border was indistinct in images of CT and abdominal ultrasound. Furthermore, the tumor was detected as a hot spot in Fluorodeoxyglucose-Positron Emission Tomography / CT, so the tumor was suspected as a pancreatic ductal carcinoma. Endoscopic Ultrasound-Fine Needle Aspiration revealed that the tumor was Solid Pseudopapillary Neoplasm (SPN), and we conducted spleen-preserving distal pancreatectomy. Histopathological findings showed that the tumor was a SPN of benign behavior. *(Accepted on August 25, 2016)*

Key words : **Solid pseudopapillary neoplasm, EUS-FNA, Pancreas**

Corresponding author

Daisuke Ueno

Department of Digestive Surgery, Kawasaki Medical
School, 577 Matsushima, Kurashiki, 701-0192, Japan

Phone : 81 86 462 1111

Fax : 81 86 462 1199

E-mail : daisuke0111@hotmail.co.jp