

## 膵併存癌 (duct-acinar cell carcinoma) の 1 切除例

名古屋大学医学部大学院医学系研究科病態制御外科学、同 病理\*

阪井 満 竹田 伸 石川 忠雄 金住 直人  
井上総一郎 金子 哲也 中尾 昭公 長坂 徹郎\*

## 症例報告

# 膵併存癌 (duct-acinar cell carcinoma) の1切除例

名古屋大学医学部大学院医学系研究科病態制御外科学、同 病理\*

阪井 満 竹田 伸 石川 忠雄 金住 直人  
井上 総一郎 金子 哲也 中尾 昭公 長坂 徹郎\*

膵管癌、腺房細胞癌あるいは島細胞癌が混在する膵併存癌はまれであり、その報告は極めて少ない。今回、我々は膵管癌と腺房細胞癌の混在する mixed duct-acinar cell carcinoma の1切除例を経験したので報告する。症例は63歳の男性で、糖尿病のため近医通院中、血糖コントロールの悪化があり、精査にて膵頭部癌と診断され当科紹介となった。腹部CTでは膵頭部に3.5cm大の境界不明瞭かつ hypovascular な腫瘍を認めた。腹部血管撮影では門脈へ直接合流する回結腸静脈に encasement が認められた。ERCPでは膵頭部領域における主膵管の途絶が認められた。CEAは軽度上昇、CA19-9は正常であった。以上より、膵頭部癌の診断の下、回結腸静脈合併膵頭十二指腸切除術および術中照射を施行した。摘出標本では、膵頭部に浸潤傾向の強い充実性腫瘍を認めた。病理組織および免疫組織学的検討により、中分化型管状腺癌と腺房細胞癌の併存癌と診断された。

## はじめに

膵併存癌はまれであり、中でも膵管癌と腺房細胞癌の混在する mixed duct-acinar cell carcinoma の報告例は、本邦において3例を数えるに過ぎず<sup>1)~3)</sup>、その病因、臨床的特徴を把握するには今後症例を重ねて検討していく必要がある。今回、我々は mixed duct-acinar cell carcinoma の1切除例を経験したので報告する。

## 症 例

患者：63歳、男性

主訴：血糖コントロールの悪化

既往歴：糖尿病、脳梗塞

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：糖尿病、脳梗塞にて近医へ通院されていた。糖尿病については経口血糖降下剤にて治療されていたが、血糖コントロールの悪化を認めたためCTを施行したところ、膵頭部に直径3.5cm大の腫瘍を認めた。膵頭部癌が疑われたため、手術目的にて当科入院となった。

Fig. 1 Enhanced CT showed a solid tumor with an indistinct border and hypovascularity, measuring 3.5 cm in diameter (a, arrow). It also showed the dilation of the main pancreatic duct from the body to the tail of the pancreas (b, arrowhead).

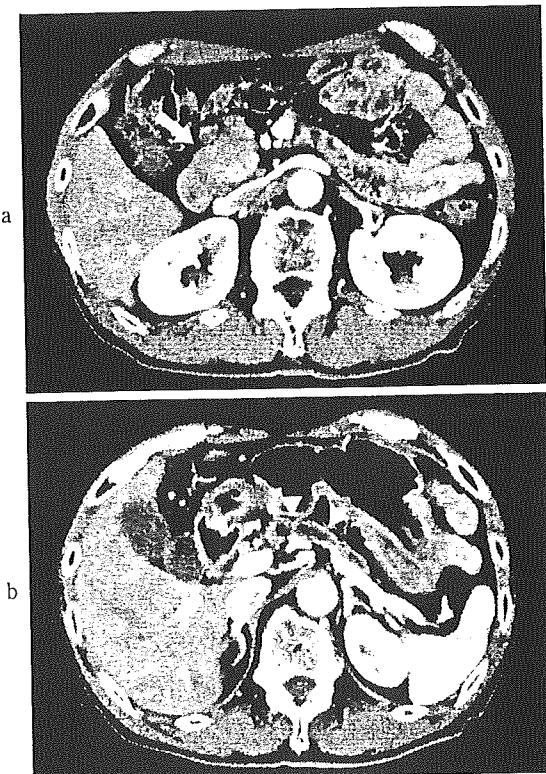


Fig. 2 Celiac arteriography demonstrated no tumor stain (a). The portal phase of superior mesenteric arteriography showed a direct invasion to the ilio-cecal vein (b, arrow).

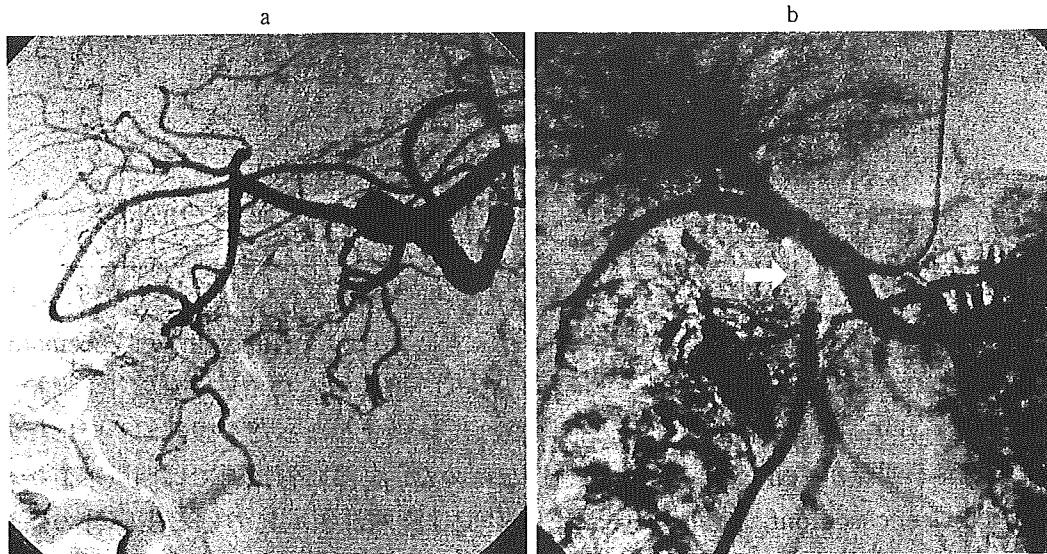
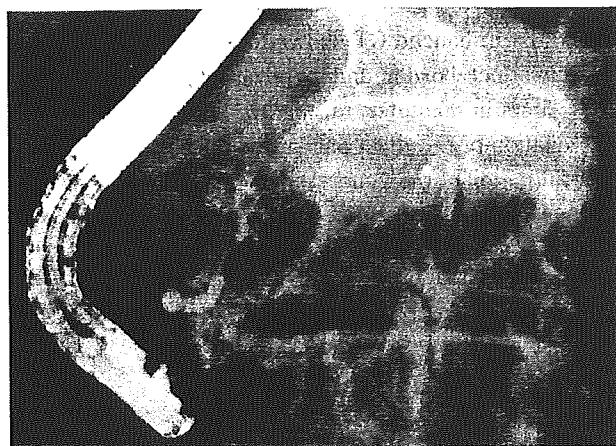


Fig. 3 Endoscopic retrograde pancreatography showed the disruption of the main pancreatic duct in the region of the pancreatic head.



入院時検査所見：HbA1c は 11.1% と著明に上昇していたが、その他的一般血液生化学検査では異常を認めなかった。腫瘍マーカーでは CEA が 5.6ng/ml と軽度の上昇を認めたが、CA19-9 は 26 U/ml と正常であった。

腹部ダイナミック CT：膵頭部に径 3.5cm 大の造影効果の乏しい腫瘍を認めた。腫瘍の辺縁は不整で、周囲脂肪織への浸潤が見られた。また、門脈分枝への浸潤が疑われた (Fig. 1a)。末梢側の主膵管は著明な拡張を認めた (Fig. 1b)。

腹部血管撮影：腹腔動脈撮影において、腫瘍濃

染像は認められなかった (Fig. 2a)。経上腸間膜動脈的門脈造影では、門脈に直接合流する回結腸静脈に浸潤像が認められた (Fig. 2b)。

内視鏡的逆行性膵管造影：膵頭部領域において、膵管の途絶を認めた (Fig. 3)。

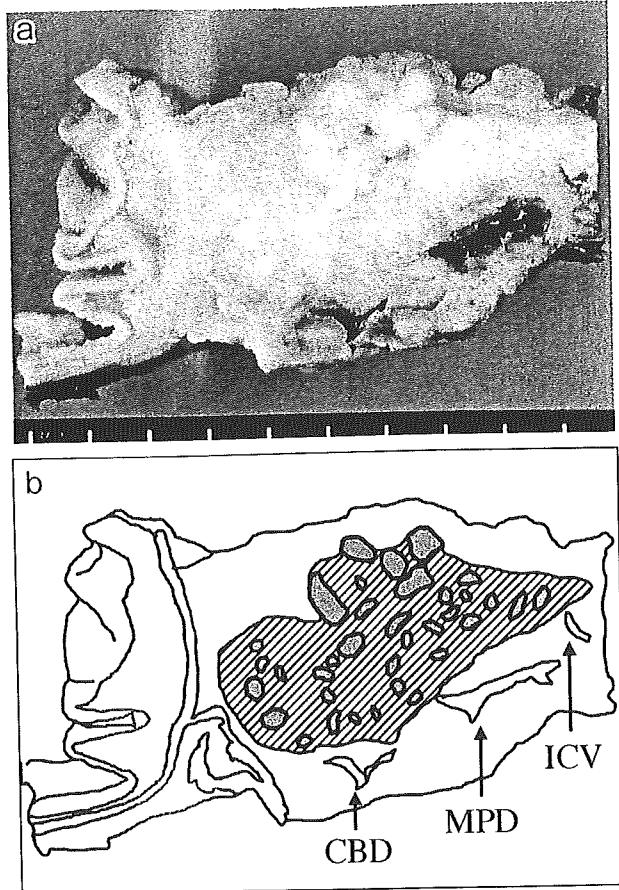
以上より、膵頭部を主座とする浸潤型膵管癌との診断の下、手術を施行した。

手術所見：肝転移、腹膜播種の所見を認めず。門脈へ直接合流する回結腸静脈の根部付近に腫瘍による浸潤を認めたが、結腸静脈のアーケードおよび門脈本幹を温存しつつ浸潤部を切除し、mesenteric approach による回結腸静脈合併膵頭十二指腸切除術を施行した。術中 30Gy の放射線照射を施行した。

摘出標本：膵頭部を主座とする 3.5×2.5cm 大の浸潤型の充実性腫瘍であった。腫瘍の境界は不明瞭であり、その内部は淡い灰白色の部分の中に、比較的均一な白色調の部分が点在していた (Fig. 4a)。

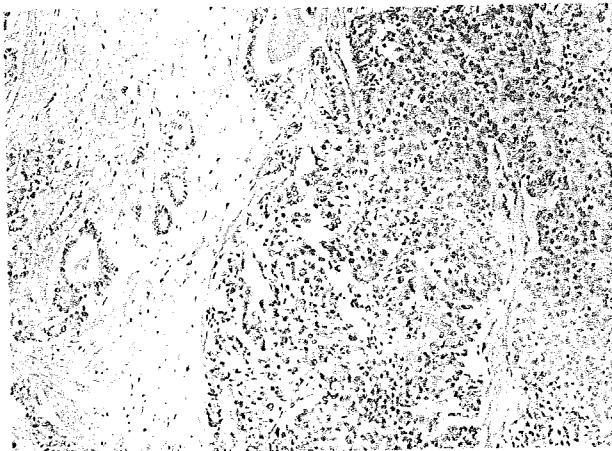
病理組織学的所見：腫瘍はクロマチンの増加した核を持つ細胞が大小不同の腺管を形成する部分と腺房を形成する部分が混在しており、中分化型管状腺癌と腺房細胞癌がモザイク状に混在する像を呈していた (Fig. 5)。肉眼的に均一な白色を呈していた部分は腺房細胞癌の成分であり、その他

**Fig. 4** Resected specimen showed a solid tumor in the head of the pancreas. The border around the tumor was unclear. The tumor consisted of acinar components and ductal ones. The former ones were uniformly white and the latter ones were faint gray (a). In the schema (b), gray areas mean acinar components and shaded areas mean ductal ones (CBD: common bile duct, MPD: main pancreatic duct, ICV: ilio-cecal vein).



の部分は主として管状腺癌から成っていた (Fig. 4b)。腫瘍は臍前方および後方被膜への浸潤を認め、神経叢浸潤も認められた。また、回結腸静脈への浸潤、No. 13, 14, 17 リンパ節への転移が認められた。第5版臍癌取扱い規約上<sup>4)</sup>、moderately differentiated tubular-adenocarcinoma and acinar cell carcinoma, intermediate type, pT3(du, s, rp, pv, pl), pN3 (No. 8, 13, 14d, 17), INF $\gamma$  ly2, v1, ne2, mpd (-), pPCM (-), pBCM (-), pDPM (-)であった。免疫組織化学的には、管状腺癌の部分は CEA 染色陽性であり、腺房細胞癌の部分はトリプシン、アミラーゼ、 $\alpha$ 1-アンチ

**Fig. 5** Histological examination showed the pancreatic tumor consisted of two distinct cell populations: ductal(left side) and acinar(right side) cells. (H&E,  $\times 100$ ).



トリプシン染色がいずれも陽性であった。いずれの部分も、クロモグラニン A 染色は陰性であり、mixed duct-acinar cell carcinoma と診断された (Fig. 6)。

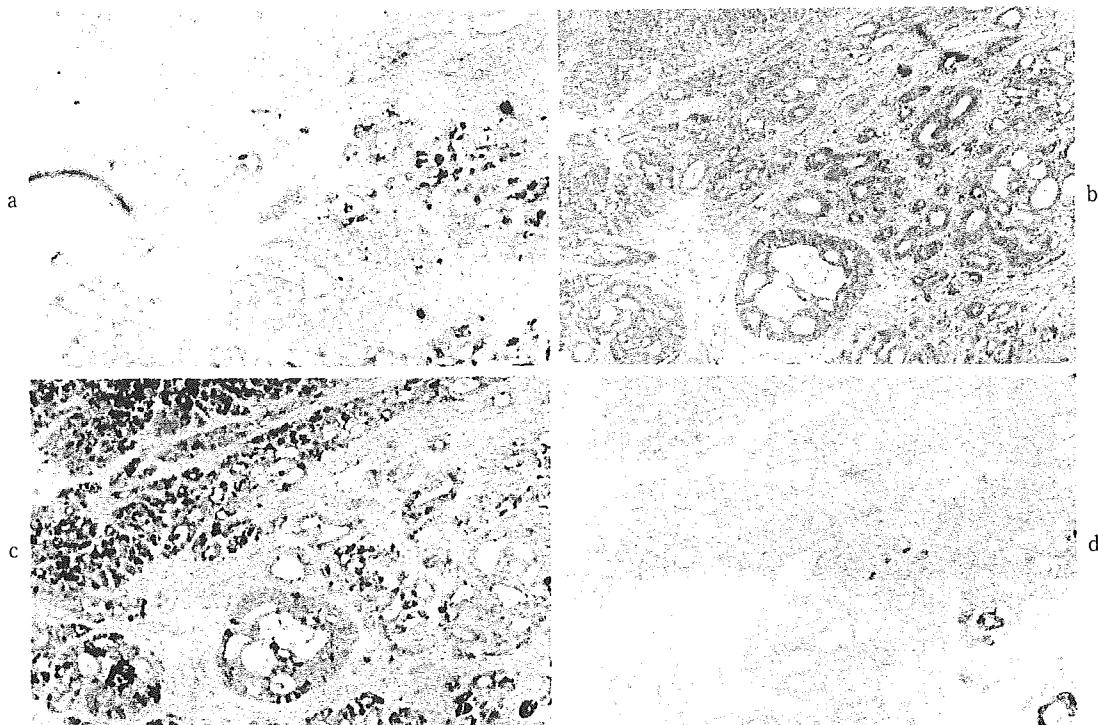
術後経過：術後は良好に経過した。その後、肝臓および肺転移を来し、術後 8 か月に死亡された。

#### 考 察

臍癌は臍管上皮由来の臍管癌、腺房細胞由来の腺房細胞癌および島細胞由来の島細胞癌に大別される。腺房細胞、島細胞は発生学的には臍管上皮から分化すると考えられており<sup>5)</sup>、また臍内分泌腫瘍は内外分泌系共通の stem cell から発生すると考えられている<sup>6)</sup>。すなわち、これらのいずれか一つの細胞から発生した臍癌は他の細胞へ分化する可能性を持っており、これらの細胞が混在する併存腫瘍が発生することは十分に予想される。しかし、日本臍臓学会の全国集計<sup>7)</sup>における過去 20 年間の臍腫瘍 11,819 例の中で、併存腫瘍はわずかに 8 例を数えるのみであった。医学中央雑誌において、「臍併存癌」「臍併存腫瘍」「duct (ductal)-acinar」「duct (ductal)-islet」「acinar-islet」などをキーワードに検索を行った結果でも、1983 年以降の本邦における報告例は会議録を除くと、自験例を含め 17 例にとどまっており<sup>1)~3) 6) 8)~19)</sup>、まれな腫瘍といえる (Table 1)。

この 17 例の内訳は、duct-acinar carcinoma が 4

**Fig. 6** Immunohistochemical findings of pancreatic tumor. a. Cancer cells in the ductal cell component were positive for CEA, but those in the acinar cell component were negative (CEA,  $\times 100$ ). b, c. Cancer cells in the acinar cell component were positive for amylase and trypsin (b: amylase,  $\times 200$ , c: trypsin,  $\times 100$ ). d. Cells in both components were negative for chromogranin A (chromogranin A,  $\times 100$ ).



例、duct-islet cell carcinoma が 8 例、acinar-islet cell carcinoma が 3 例、三つのすべての成分からなる duct-acinar-islet cell tumor が 2 例であった。患者の平均年齢は、60.8(34~80)歳、男女比は 8:9 であった。部位では、duct-acinar cell carcinoma のみ頭部に多かったが、その他は 13 例中 9 例が体尾部に位置していた。腫瘍径の平均は 4.3 (0.7~11.0) cm であった。Duct-acinar-islet tumor の 2 例がいずれも 2cm 未満であったが、その他に各種腫瘍間に明らかな違いは認められなかった。興味深いのは、17 例のうち 14 例が ductal cancer の成分を含んでいるのにもかかわらず、うち 8 例が hypervascula であったことであった。通常型膵管癌の大部分が、hypovascular であることを考慮すると、この vascularity の変化は、元来 hypervascular であることが多い acinar あるいは islet cell carcinoma が併存することに起因すると考えられた。また、hypervascula な腫瘍はいずれも明瞭な境界を持ち、hypovascular な腫瘍は 1 例を除

くとすべて境界不明瞭であった。さらに、vascularity と予後との関連を調べると、長期予後の得られた症例がいずれも hypervascula な腫瘍であるのに対し、hypovascular な腫瘍を持つ症例はいずれも 1 年以内に死亡もしくは再発を来していた。このことは、元来 hypovascular な ductal cancer に比べて、acinar および islet cancer のほうが、比較的良好な予後を持つ<sup>7)</sup>ことと関連があると考えられた。すなわち、併存腫瘍においては vascularity や発育形式といった腫瘍の性質を決定している成分が予後を規定することが推察された。

Duct-acinar cell carcinoma についての報告としては、1977 年に Webb<sup>20)</sup>が 12 例の腺房細胞腫瘍の検討の中で、4 例が同疾患であったと報告しており、その後 Cubilla ら<sup>21)</sup>が 1 例報告しているが、以後新たな症例の報告は少なく、本邦では自験例を含めて 4 例<sup>1)~3)</sup>を数えるに過ぎない (Table 1)。

では、duct-acinar cell carcinoma のいずれの部分が、腫瘍の進展形式や予後を規定するのである

Table 1 Reports of patients with combined tumor of the pancreas

Author(s)	Ref.	Year	Age/ Sex	Site	Size	Tumor type	Border	Vascularity	Spread	Operation	Prognosis
Duct-acinar											
Sakata et al.	1)	1987	67/F	Body ~ Tail	11 cm	Solid	clear	Hyper	H, PVT	DP	7M dead
Inaba et al.	2)	1987	63/M	Head	6.5 cm	Cystic	clear	Hyper	H	PD + HR	39M alive
Goshima et al.	3)	1988	75/F	Head ~ Body	4.3 cm	Solid	unclear	Hypo	—	TP	6M recurrence
Our case	—	—	63/M	Head	3.5 cm	Solid	unclear	Hypo	LN, PV	PD	8M dead
Duct-islet											
Nakamoto et al.	8)	1990	48/M	Body	0.7 cm	Solid	clear	Hyper	—	En	38M alive
Takano et al.	9)	1993	48/M	Head	1.1 cm	Solid	clear	Hypo	—	PD	Unknown
Nose et al.	10)	1994	80/F	Body ~ Tail	3.2 cm	Cystic	Unknown	Unknown	—	En	Unknown
Kuroda et al.	11)	1996	56/F	Head	3.0 cm	Solid	Unclear	Hyper	—	En	Unknown
Tsukamoto et al.	12)	1999	62/M	Body	4.8 cm	Solid	clear	Hyper	—	DP	6M alive
Ando et al.	13)	1999	71/M	Head	5.5 cm	Solid	unclear	Hypo	LN, PV	PD	6M dead
Takeuchi et al.	14)	1999	62/F	Body	7.0 cm	Solid	unclear	Hypo	—	DP	9M dead
Konishi et al.	15)	2000	61/M	Tail	5.0 cm	Cystic	clear	Hyper	H, LN	DP	3Y alive
Acinar-islet											
Machida et al.	16)	1991	34/F	Body	1.7 cm	Solid	clear	Hyper	—	En	18M alive
Inoue et al.	17)	1997	38/F	Head	4.4 cm	Solid	Unknown	Hyper	—	Unknown	Unknown
Igarashi et al.	18)	1997	60/M	Body ~ Tail	8 cm	Solid	clear	Hyper	—	DP	Unknown
Duct-acinar-islet											
Kiriyama et al.	6)	1991	73/F	Body	1.2 cm	Solid	clear	Hyper	—	En	6M alive
Tanakaya et al.	19)	2001	72/F	Body	1.4 cm	Solid	clear	Hyper	—	En	6Y alive

Ref. : Reference number

H : Liver metastasis, PVT : Portal venous thrombosis, LN : Metastasis to lymph node, PV : Invasion to portal venous system  
 PD : Pancreatoduodenectomy, DP : Distal pancreatectomy, TP : Total pancreatectomy, HR : Hepatic resection, En : Enucleation

うか。膵管癌と腺房細胞癌は、元々いくつかの異なる臨床的特徴を持つことが知られている<sup>22)</sup>。膵管癌は通常 vascularity の乏しい充実性腫瘍であるが、腺房細胞癌は比較的 vascularity に富む例が多く、腫瘍が壊死を伴った場合は囊胞状を呈することが多い。また、腺房細胞癌の場合も膵管癌同様、リンパ節転移および血行性転移を来す例が多いが、これは進行して腫瘍径が大きくなつてから診断されることが多いためとされている。予後については、日本膵臓学会の全国集計<sup>7)</sup>によると、腺房細胞癌のほうが膵管癌に比べると良好と言える。こうした見解をふまえ、duct-acinar cell carcinoma の 4 例をみると、臨床上、膵管癌の特徴の強い症例と、腺房細胞癌の特徴の強い症例とに分かれている。五嶋ら<sup>3)</sup>の症例と自験例の 2 例は、その前者に属すると考えられた。これらの症例は、いずれも vascularity に乏しく、画像上門脈や主膵管への encasement を示すなど、通常型膵管癌同

様 invasive な性質を示しており、1 年以内に死亡もしくは再発していた。一方、他の 2 例についてはいずれも vascularity に富み、その他の画像所見や臨床経過も通常型膵管癌とは、趣を異にしており、むしろ腺房細胞癌の特徴を示していた。稲葉ら<sup>2)</sup>の症例は中心部が変性壊死を伴う囊胞状の病変であり、expansive に発育する medullar cancer であったために手術時すでに腫瘍径が 6.5cm と大きく同時性肝転移を 2 か所認めていたにもかかわらず、切除後 3 年以上にわたって無再発生存であった。また、坂田ら<sup>1)</sup>の症例においても門脈内腫瘍栓塞を伴っていることや、腫瘍径 11cm にいたるまで発見されなかった点など、通常型膵管癌とは明らかに異なる臨床像を呈していた。このように vascularity の違いは、他の併存腫瘍でも見られたように、腫瘍の発育形式や患者の予後を規定しており治療を考慮するうえで検討すべき所見と考えられた。しかし、こうした併存腫瘍の臨床的特

徵の違いがどのような機序で生じるのか全く不明であり、併存腫瘍の成因も含め今後十分に検討していく必要があると考えられた。

## 文 献

- 1) 坂田竜彦, 三村 久, 高倉範尚ほか: 特異な発育進展様式を呈した、膵管癌と腺房細胞癌の併存した膵癌の1例. 胆と膵 8: 1349—1353, 1987
- 2) 稲葉直樹, 笠原小五郎, 柏井昭良ほか: 膵頭部 mixed ductal and acinar cancer の1治験例. 日外会誌 88: 773—777, 1987
- 3) 五嶋博道, 山崎芳生, 武内徹郎ほか: 膵の併存癌における膵全摘の1例. 胆と膵 9: 463—467, 1988
- 4) 日本膵臓学会編: 膵癌取扱い規約. 第5版. 金原出版, 東京, 2002, p2—29
- 5) 笠原小五郎, 永井秀雄, 水沼洋文ほか: 混合型膵腫瘍. 別冊日本臨床 領域別症候群 10. 日本臨床社, 大阪, 1996, p201—207
- 6) 桐山正人, 伊与部尊和, 岩佐和典ほか: 膵 Duct-Acinar-Islet cell tumor の1例. 肝と膵 12: 1277—1282, 1991
- 7) 日本膵臓学会膵癌登録委員会: 日本膵臓学会膵癌登録 20年間の総括. 18. 2003, p101—169
- 8) 中本 周, 岸 清志, 森 将晏: Duct-islet cell tumor の1例. 岡山外科病理研会誌 27: 114—115, 1990
- 9) 高野浩一, 大橋計彦, 猪狩功造ほか: 著明な尾側主膵管拡張を呈した膵併存癌の1切除例. 消内視鏡の進歩 42: 309—311, 1993
- 10) 能勢聰一郎, 浜家一雄: 脇体尾部 duct-islet cell carcinoma の1例. 病院病理 12: 7, 1994
- 11) 黒田 誠, 笠原正男, 安倍雅人ほか: 脇の Duct-Islet cell Tumor が示唆された1例. 病院病理 13: 139, 1996
- 12) 塚本好彦, 佐藤美晴, 五島正裕: 脇の duct-islet cell carcinoma の1例. 日臨外会誌 60: 193—197, 1999
- 13) 安藤達也, 山中若樹, 田中恒雄ほか: somatostatin 染色陽性の膵併存腫瘍の1例. 日消病会誌 96: 973—976, 1999
- 14) 竹内仁司, 田村竜二, 土屋 健ほか: ソマトスタチノーマ症候群を呈した膵管・島細胞癌の1例. 日消外会誌 32: 2015—2019, 1999
- 15) 小西一朗, 長森正則, 上田順彦ほか: 囊胞性変化を示し肝・リンパ節転移を伴った膵尾部 duct-islet cell carcinoma の1例. 脇 臓 15: 26—31, 2000
- 16) 町田浩道, 中谷雄三, 小島幸次郎ほか: 脇体部 acinar-islet cell tumor の1例. 日外会誌 92: 603—606, 1991
- 17) 井上 健, 小林庸次, 山本隆嗣: Mixed acinar-islet cell tumor of pancreas の1例. 病院病理 14: 98, 1997
- 18) 五十嵐直喜, 勝又貴夫, 中山隆盛ほか: 併存癌 (acinar-islet cell carcinoma) の1例. 日臨外医会誌 58: 1630—1634, 1997
- 19) Tanakaya K, Teramoto N, Konaga E et al: Mixed duct-acinar-islet cell tumor of the pancreas. Report of a case. Surg Today 31: 177—179, 2001
- 20) Webb JN: Acinar cell neoplasms of the exocrine pancreas. J Clin Pathol 30: 103—112, 1977
- 21) Cubilla AL, Fitzgerald PJ: Pancreas cancer. 1. Duct adenocarcinoma. Ann Pathol 1: 241—289, 1977
- 22) 澄井俊彦, 船越顯博, 大内二郎ほか: 脇腺房細胞癌 6症例の臨床的特徴 通常型膵管癌との比較. 脇臓 16: 455—459, 2001

## Mixed Duct-Acinar Cell Carcinoma of the Pancreas : Report of a Case

Mitsuru Sakai, Shin Takeda, Tadao Ishikawa, Naohito Kanazumi,  
Soichiro Inoue, Tetsuya Kaneko, Akimasa Nakao and Tetsuro Nagasaka\*

Department of Surgery II and Department of Pathology\*, Nagoya University School of Medicine

We report a rare case of pancreatic cancer, duct-acinar cell carcinoma. The tumor was detected on CT in the pancreatic head of a 63-year-old man who had aggravated diabetes mellitus. Enhanced CT showed a solid tumor with an indistinct border and hypovascularity, 3.5cm in diameter. Angiography showed direct invasion to the iliocecal vein. ERP showed a disrupted main pancreatic duct. Laboratory findings were unremarkable, except for serum CEA of 5.6ng/ml and hyperglycemia. With a diagnosis of ductal invasive cancer of the pancreatic head, we conducted pancreateoduodenectomy with resection of the iliocecal vein and intraoperative radiotherapy. Histopathological examination showed that the tumor consisted of two distinct cell populations : duct and acinar cells. According to immunohistochemical analysis, duct cells were positive for CEA, whereas acinar cells were positive for amylase, trypsin, and alpha-1-antitrypsin. Both were negative for chromogranin A. These findings suggested mixed duct-acinar carcinoma of the pancreas, a very rare occurrence whose clinical and pathological features are little known. Further cases and studies are thus needed to clarify its pathogenesis.

**Key words :** duct-acinar cell carcinoma, pancreatic cancer

(Jpn J Gastroenterol Surg 38 : 1821—1827, 2005)

**Reprint requests :** Mitsuru Sakai Department of Surgery II, Nagoya University School of Medicine  
65 Tsurumai-cho, Showa-ku, Nagoya, 466-8550 JAPAN

**Accepted :** May 25, 2005

## 膝頭十二指腸第 II 部切除術

中尾 昭公 竹田 伸 井上 総一郎  
野本 周嗣 金住 直人 杉本 博行

## 特集 膵頭十二指腸切除術と関連術式

### 膵頭十二指腸第II部切除術

中尾昭公\* 竹田伸\*\* 井上総一郎\*\*

野本周嗣\*\* 金住直人\*\* 杉本博行\*\*

#### はじめに

膵頭部領域腫瘍に対しては、一般的に膵頭十二指腸切除術（以下、PD）や幽門輪温存膵頭十二指腸切除術（以下、PPPD）が施行されてきている。我々は粘液産生膵腫瘍（intraductal papillary mucinous neoplasm；IPMN）などの膵頭部良性腫瘍や低悪性度病変に対して、膵頭部と十二指腸第II部を大小乳頭を含めて3~4 cm 切除する膵頭全切除術を1988年に初めて施行し、13例経験した1994年に膵頭十二指腸第II部切除術（pancreatic head resection with segmental duodenectomy；PHRSD）として初めて本誌に報告した<sup>1)~7)</sup>。切除範囲と再建法は図1, 2に示した。本術式は機能温存を考慮した縮小手術であり、簡便かつ安全に施行可能な膵頭全切除術式と位置づけている。

本術式の適応は、膵頭部良性腫瘍、慢性膵炎、IPMN、stage I の下部胆管癌や十二指腸乳頭部癌などが挙げられる。機能温存術式として本法と比較すべき術式に、十二指腸温存膵頭切除術（以下、DPPHR）<sup>8)9)</sup>がある。総胆管温存の可否、膵頭部全切除あるいは亜全摘除かの問題を考慮する必要があり、とくに総胆管や乳頭機能温存には後上膵十二指腸動脈（以下、

PSPDA）より分岐する乳頭枝の重要性が報告されており<sup>9)</sup>、いわゆる groove 領域の膵実質の温存が必要になる。すなわち、膵頭部を全切除して総胆管を温存することは原理的に不可能と思われ、術後十二指腸や総胆管の壊死性穿孔を起こす可能性がある。PHRSDは、これらの合併症を回避できる機能温存術式であり、その術式の詳細について解説する。

#### I. 手術手技

本手術のポイントは、温存する十二指腸の血流維持のための膵頭部領域の血管処理にある。

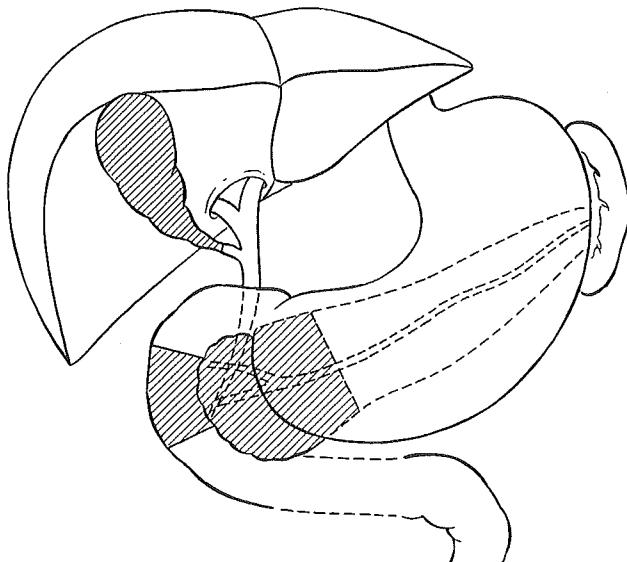


図1 PHRSDにおける切除範囲  
(斜線部、文献6より改変)

\* Akimasa NAKAO 名古屋大学病態制御外科 教授

\*\* Shin TAKEDA et al. 同外科

十二指腸口側の血流維持のために胃十二指腸動脈（以下、GDA）を、肛門側の血流維持のために前下脾十二指腸動脈（以下、AIPDA）をできるかぎり温存する<sup>3)</sup>。また、肝十二指腸間膜を処理せず、上十二指腸動脈（以下、SDA）

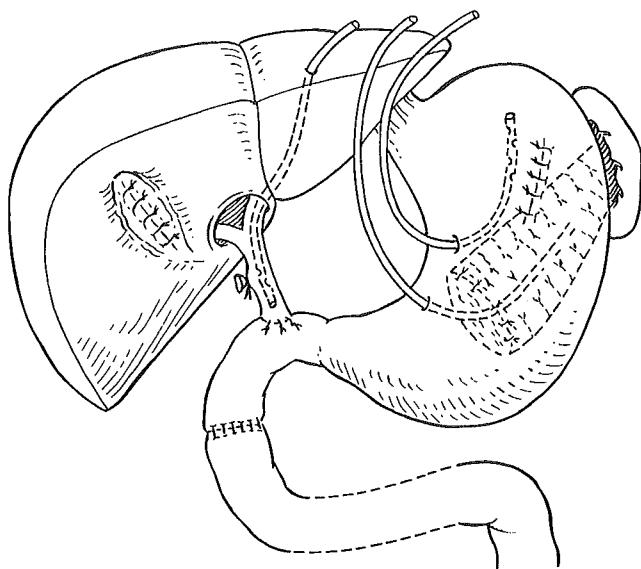


図 2 PHRSD における再建図  
(文献 6 より改変)

を温存することによっても十二指腸口側の血流を維持することができ、十二指腸の切除範囲が少なくてすむ（図 3）。

### 1. 開 腹

上腹部正中切開で開腹する。

### 2. 胃結腸間膜の切離

大網は温存し、胃結腸間膜を横行結腸付着部で切離し、網囊腔を開き脾に到達する。腫瘍の局在と進展範囲を術中 US で診断し、脾の切離線を決定する。

### 3. 脾頭部血管系の処理

脾頭部下縁で上腸間膜静脈を剥離し、露出後、胃結腸動脈幹ならびに右胃大網静脈は根部で結紮・切離する。右胃大網動脈（以下、RGEA）は温存する。十二指腸後面と脾頭部前面の間を走行する GDA より脾頭部へ向かう前上脾十二指腸動脈（以下、ASPDA）を根部で結紮・切離（図 4）し、ついで PSPDA も根部で結紮・切離する（図 5）。また、脾頭部へ分岐する数本の細い動脈も結紮・切離すると、GDA は十二指腸後面に付着したまま温存可能となる<sup>3)</sup>。炎症が強く GDA が温存不可能なと

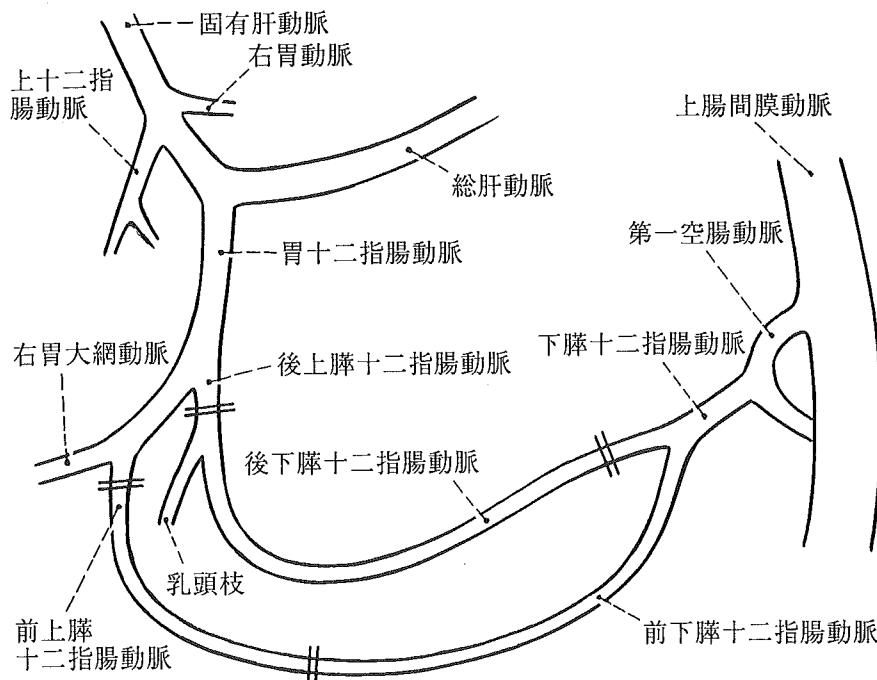


図 3 PHRSD における血管処理

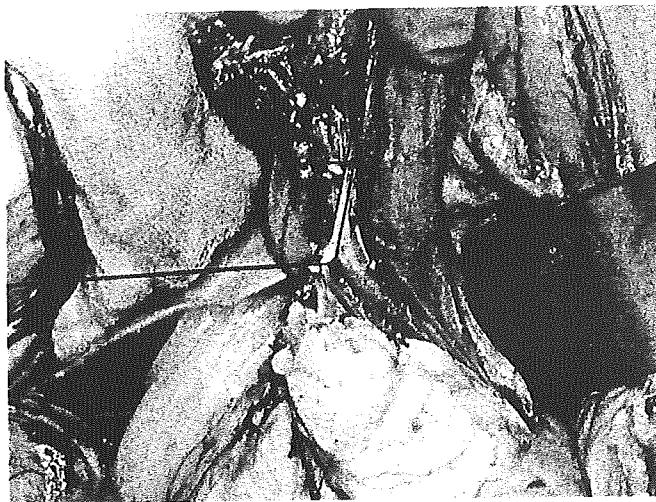


図 4 GDA を温存し ASPDA を結紮・切離する。

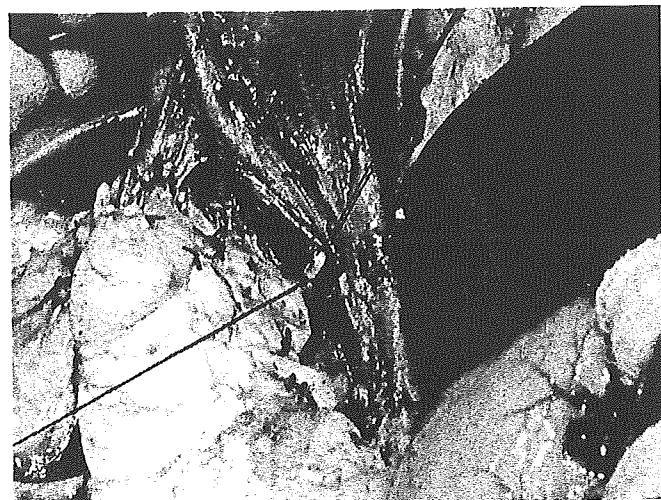
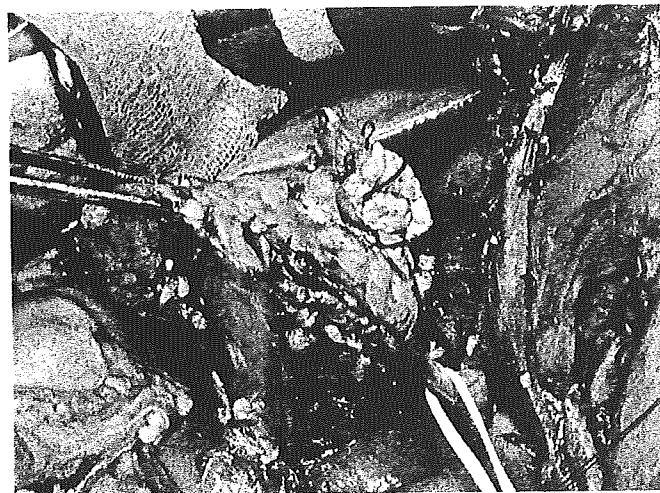


図 5 PSPDA も GDA を温存して結紮・切離する。

図 6 総胆管はテーピングし、肝を切離し  
AIPDA ができるかぎりに温存する。

きは、GDA をなるべく長く残して結紮・切離してもかまわない。こうして十二指腸が第 I 部から第 II 部にかけて幽門輪より 5~7 cm 温存される。

#### 4. 胆囊摘除と総胆管剥離

胆囊は摘除し、肝十二指腸間膜にはいっさい手をつけず、右胃動脈（以下、RGA）、SDA を温存すると、十二指腸第 I 部から第 II 部の血流は良好に維持される。肝上縁で剥離を進め、総胆管はテーピングしておく（図 6）。

#### 5. 脾の切離

脾と上腸間膜静脈、門脈を剥離し、脾を切離

予定線で切離するが、頭部は結紮し、尾側は、上・下縁にそれぞれ支持糸をかけ結紮後、小腸鉗子で軽く把持する。尾側脾切離端の止血後、主脾管内に脾管チューブを留置、固定する。

#### 6. 脾頭部の剥離

脾頭部下縁と十二指腸第 III 部の間に脾に近接して剥離すると、AIPDA が露出され、十二指腸枝を温存しつつ、脾枝のみていねいに結紮・切離し、AIPDA をできるだけ長く温存する（図 6）。脾後筋膜（十二指腸間膜）が広く温存され、十二指腸第 II 部から第 III 部は AIPDA を付着したまま温存される。AIPDA は十二指腸大乳頭のやや肛門側で結紮・切離し、後下脾十二指腸動脈（以下、PIPDA）は結紮・切離する（図 7）。十二指腸第 II 部肛門側も全周剥離する。

#### 7. 脾頭部の摘出

脾鉤部を脾に近接して剥離し、脾頭部神経叢第 II 部を温存することで、下脾十二指腸動脈（以下、IPDA）ならびにそれより分岐する AIPDA は温存される。脾頭神経叢第 I 部も温存しながら、脾頭部を剥離する。先程テーピングした総胆管は脾上縁で切離する（図 6）。脾頭部は十二指腸大小乳頭を含んだ第 II 部 3~4 cm となり（図 8），血流のやや悪くなった十二指腸第 II 部を 3~4 cm 切除すると脾頭部は全切除される（図 9）。

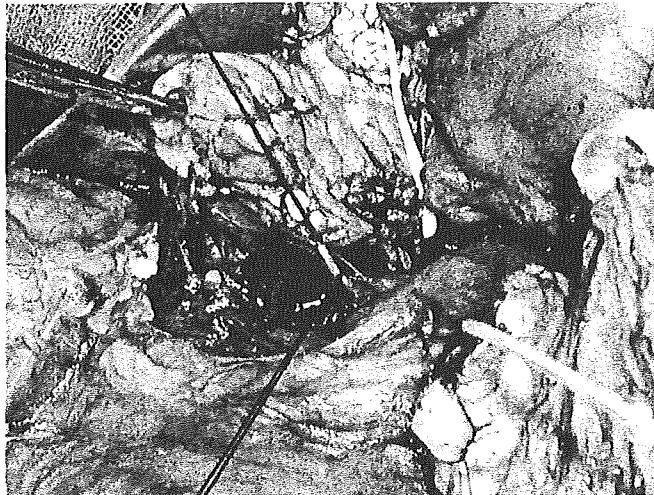


図 7 PIPDA は結紮・切離する。

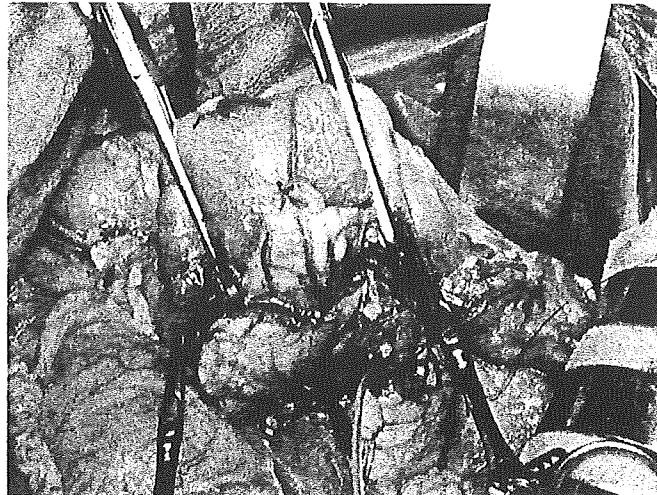


図 8 十二指腸第II部切除により  
脾頭部が全摘される。

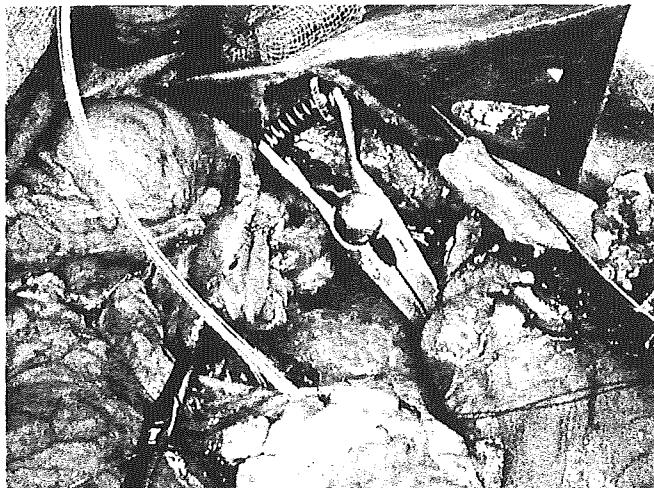


図 9 脾頭部と十二指腸第II部が切除された状態

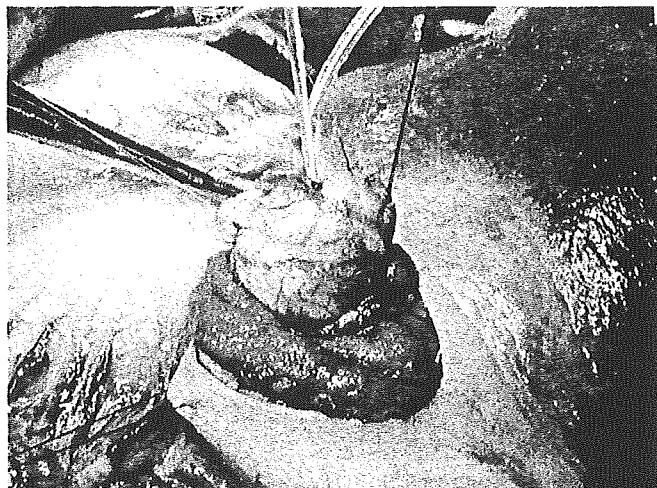


図 10 胃内腔での脾胃吻合

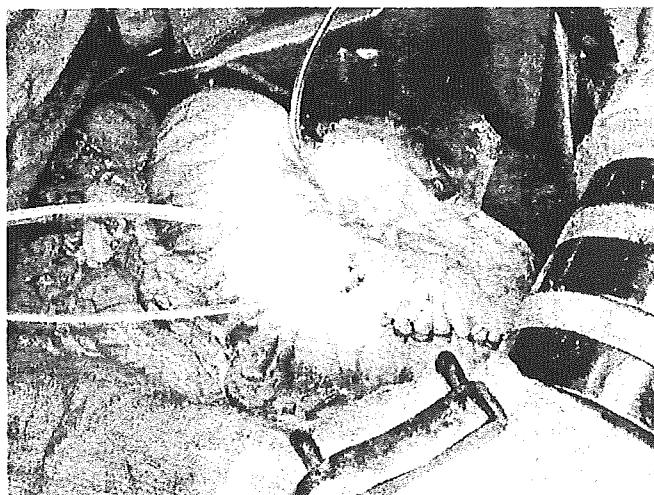


図 11 胃前壁切開部の縫合閉鎖と脾管チューブ、  
胃瘻チューブの誘導

### 8. 消化管再建

胃後壁に脾を吻合するが、胃後壁の切開は胃角部よりやや口側におく<sup>10)</sup>。胃切開の長さは脾切離面の長径の約 2/3 の長さとし、止血を確実にする。ついで胃前壁を切開し、尾側脾断端を胃内へ誘導し、脾断端を 0.5~1.0 cm 程度十分に胃内へ突出させ、胃全層と脾後面、さらに前面を 4-0 プロリン糸で結節縫合し固定する<sup>5)</sup>(図 10)。プロリン糸は吸収されないため、将来胃内視鏡検査時に脾管開口部を検索する目標となる。脾管チューブは胃前壁から体外へ誘導し、胃瘻チューブも留置する。胃前壁切開部を

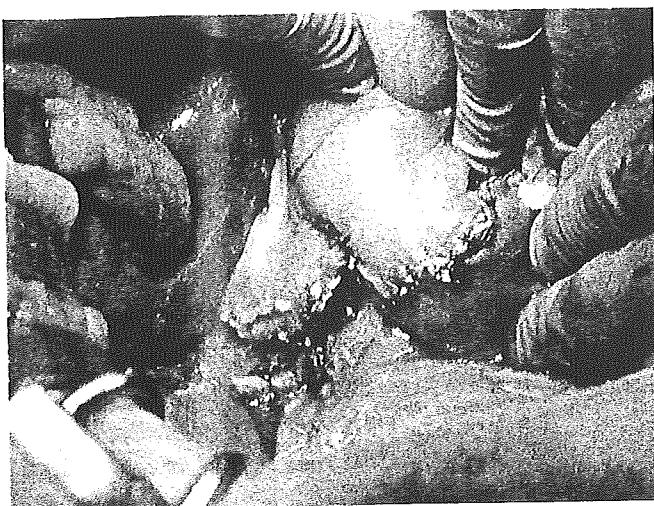


図 12 十二指腸十二指腸端端吻合と総胆管  
十二指腸端側吻合

縫合閉鎖する(図11)。

ついで、十二指腸十二指腸端端吻合を施行し、最後に、総胆管と十二指腸第I部を端側吻合し(図12)、再建を終了する。なおRTBDチューブは留置している。

#### 9. ドレーン留置と閉腹

ペンローズドレンを胆管空腸吻合部と脾胃吻合部の前面、後面にそれぞれ留置し閉腹する。

## II. 術後管理

術後2週間でRTBDチューブ造影、胃瘻チューブ造影を施行し、縫合不全、通過障害のないことを確認し、クランプする。経口摂取を開始し、RTBDチューブ、胃瘻チューブ、脾管チューブは4週で抜去している。

#### おわりに

1988年より現在までに本法を39例に施行したが、術死、入院死は1例も経験せず、全例が社会復帰し、QOLもきわめて良好であった。消化管ホルモン動態や胃排出能については

PPPDに比較して良好であり、PHRSDは簡便かつ術後合併症も少ない機能温存術式として推奨できると考えている。

#### 文 献

- 1) 中尾昭公ほか：脾頭十二指腸第II部切除術. 手術 48:636-638, 1994
- 2) Nakao A : Pancreatic head resection with segmental duodenectomy and preservation of the gastroduodenal artery. Hepato-gastroenterol 45:533-535, 1998
- 3) 中尾昭公ほか：胃十二指腸動脈温存脾頭十二指腸第II部切除術. 手術 53:33-38, 1999
- 4) 中尾昭公：脾頭十二指腸第II部切除術. 消外 22:1493-1499, 1999
- 5) 中尾昭公ほか：粘液産生脾腫瘍に対する脾頭十二指腸第II部切除術(脾胃吻合). 手術 54:21-26, 2000
- 6) 中尾昭公ほか：脾頭十二指腸第II部切除術の適応と術式. 消外 24:71-78, 2001
- 7) 竹田 伸ほか：脾頭十二指腸第II部切除術. 手術 58:1841-1845, 2004
- 8) Takada T et al : Duodenum preserving pancreateoduodenectomy ; A new technique for complete excision of the pancreas with preservation of biliary and alimentary integrity. Hepato-gastroenterol 40:356-359, 1993
- 9) Kimura W et al : A new method of duodenum-preserving subtotal resection of the head of the pancreas based on the surgical anatomy. Hepato-gastroenterol 43:463-472, 1996
- 10) Kasuya H et al : Postoperative delayed emptying in pylorus preserving pancreateoduodenectomy using pancreaticogastrostomy : Comparison of the reconstruction position. Hepato-gastroenterol 44:856-860, 1997

## 症 例

## 胆管狭窄を伴った Churg-Strauss 症候群と考えられた 1 例

名古屋大学大学院病態制御外科

山田 豪 金子 哲也 杉本 博行  
野本 周嗣 中尾 昭公

症例は64歳、男性。黄疸を主訴に近医受診し、腹部CTにて肝内胆管拡張を認めPTBDを留置し、肝門部胆管癌の疑いで当院紹介となった。入院後減黄不良のため十分なドレナージを行い、あわせて胆管生検を施行した。生検の結果は血管炎のみで悪性所見は認めなかった。血液検査上、著明な好酸球、IgE上昇を認め、また既往歴に喘息発作があることよりChurg-Strauss症候群を疑い、胆管狭窄はその随伴病変と考えられた。しかし肝門部胆管癌は否定できず手術も考慮したが、肺炎、胆管炎による高熱のため全身状態が悪化し内科的治療とした。ステロイドの開始により胆管狭窄は徐々に改善され、ドレナージチューブも抜去でき、ステロイドを漸減した。Churg-Strauss症候群により胆管狭窄をきたした報告はなく、若干の文献的考察を加えて報告する。

索引用語：Churg-Strauss 症候群、肝門部胆管癌、好酸球性胆管炎

## 緒 言

Churg-Strauss症候群(以下、CSSと略記)は、1951年にChurgとStraussによって結節性多発動脈炎より分離され、壊死性血管炎と血管外肉芽腫性病変を特徴とする疾患である<sup>1)</sup>。今回われわれは肝門部胆管癌との鑑別に難渋したCSS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

患者：64歳、男性。

主訴：黄疸。

既往歴：50歳より喘息、肝炎、10年前より後腹膜線維症、2年前に早期胃癌にて手術。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：黄疸を主訴に近医受診し、腹部CTにて肝内胆管拡張を認めたため経皮経肝胆道ドレナージ(percutaneous transhepatic biliary drainage、以下PTBDと略記)を留置し、肝門部胆管癌の疑いで当院紹介となった。

入院時現症：身長165cm、体重38kg、体温36.8°C。腹部は平坦、軟で腫瘍を触知せず、眼球結膜に黄疸を

認めた。

血液検査所見：黄疸と胆道系酵素の著明な上昇を認めた。肝炎ウイルスは陰性であり、腫瘍マーカーも正常値であった(表1)。

入院時画像所見：胆管造影では右肝管は造影されず、左肝管は肝門部で著明な狭窄を認めた。腹部造影

表1 血液検査所見

WBC	8,100 /mm <sup>3</sup>	TP	8.7 g/dl
NEUT	2,000 /mm <sup>3</sup>	Alb	3.3 g/dl
LYMP	1,900 /mm <sup>3</sup>	TB	3.8 mg/dl
RBC	307×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	DB	2.8 mg/dl
Hgb	11.2 g/dl	GOT	79 IU/l
PLT	21.8×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	GPT	32 IU/l
		LDH	222 IU/l
HBs-Ag	(-)	ALP	4,104 IU/l
HCV-Ab	(-)	γ-GTP	437 IU/l
		LAP	227 IU/l
PT	104 %	ChE	0.33 △pH
APTT	94 %	Amy	187 IU/l
		BUN	26 mg/dl
CEA	1.1 ng/ml	Cre	1.2 mg/dl
CA19-9	40 U/ml	Na	135 mEq/l
p-ANCA	(-)	K	4.3 mEq/l
抗核抗体	(+)	Cl	100 mEq/l
抗ミトコンドリア抗体	(+)	BS	124 mg/dl

2004年11月29日受付 2005年1月27日採用

&lt;所属施設住所&gt;

〒466-8550 名古屋市昭和区鶴舞町65

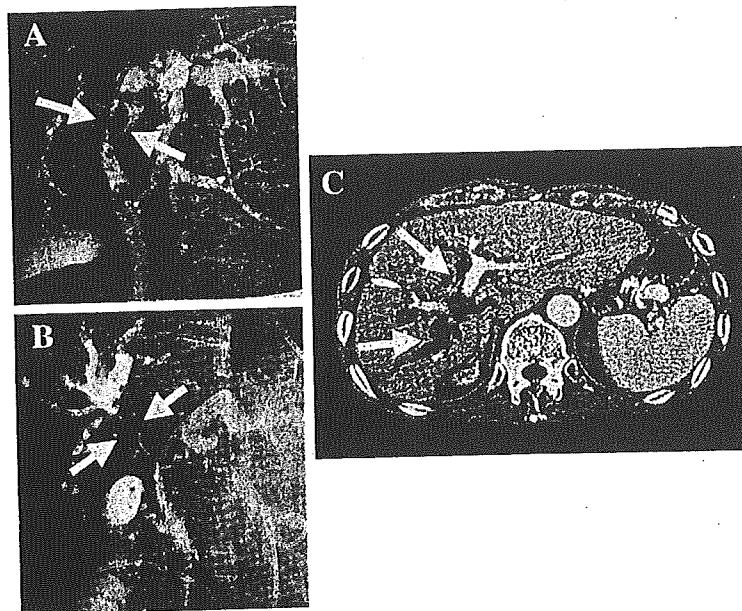


図1 A 入院時ERCP, B PTBD造影：肝門部胆管の著明な狭窄を認め、右肝管は造影されない。  
C 入院時造影CT：肝内胆管の拡張を認める。

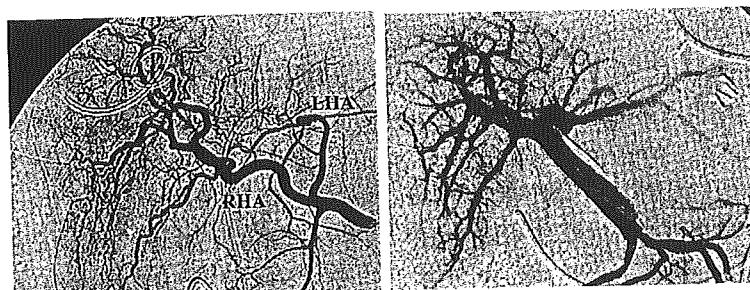


図2 血管造影：門脈、肝動脈とともにencasementは認めない。

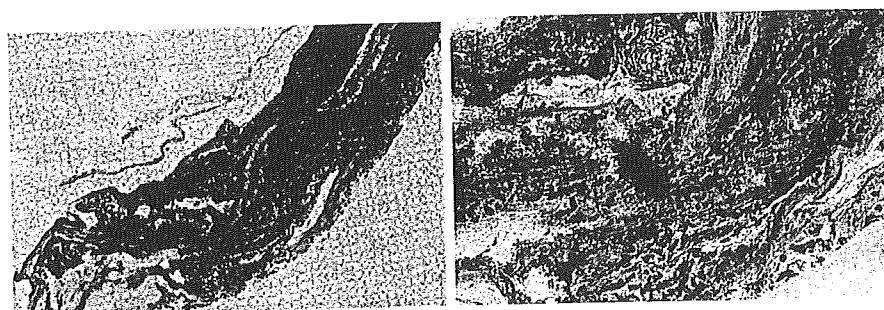


図3 胆管生検所見：好酸球が浸潤しているが、悪性所見は認めず血管炎の所見である（左：HE×100, 右：HE×400）。

CTでは肝内胆管の拡張を認めたが、明らかな腫瘍像を指摘することはできなかった(図1)。減黄不良のため、内視鏡的胆道ドレナージ(endoscopic retrograde biliary drainage, 以下ERBDと略記)。PTBDを追加して十分なドレナージを行った。

血管造影所見：血管造影では肝動脈に異常所見は認めなかつた。またこの時点では肝門部胆管癌を疑い、手術に備えて経皮経肝門脈枝塞栓術(percutaneous transhepatic portal embolization, PTPE)を施行した。門脈造影では門脈に異常所見は認めなかつた(図2)。

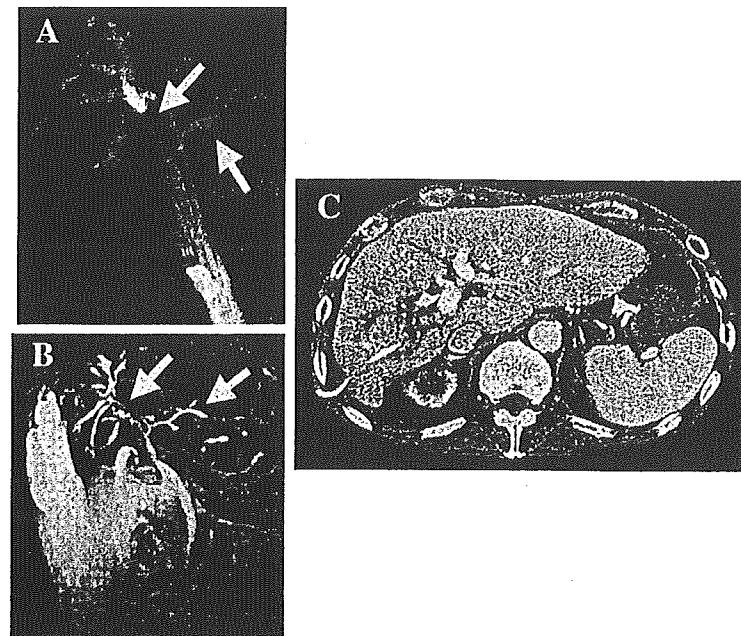


図4 A 治療開始1カ月後, PTBD 造影, B MRCP: 右肝管と総胆管の交通を認め, 左肝管は拡張もなくスムーズとなる。  
C 造影 CT: 肝内胆管の拡張は認めない。

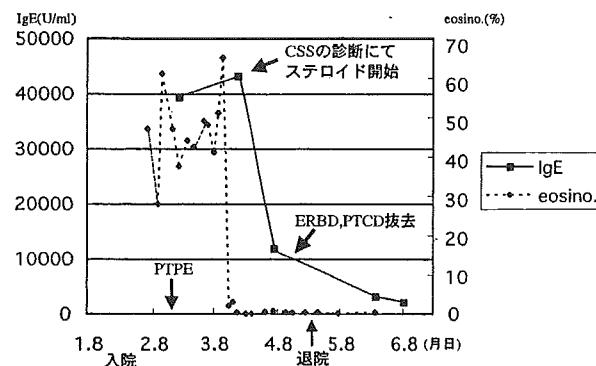


図5 臨床経過

胆管生検所見：生検は2回行ったが、胆管上皮と粘膜下結合織にはリンパ球、形質細胞、好酸球を混じた炎症細胞が著明であったが、悪性所見は認めず血管炎の所見であった(図3)。胆汁細胞診も施行し、疑陽性であった。以上の所見より原発性硬化性胆管炎(以下、PSCと略記)などの良性胆道狭窄も疑われたが、肝門部胆管癌を完全には否定できなかつたため手術を考慮した。しかし入院して約2カ月後、胆管炎、肺炎を合併し白血球は $14,300/\text{mm}^3$ まで上昇し、 $38^\circ\text{C}$ 台の高熱が続いた。血液検査で白血球分画を測定したところ著明な好酸球の増加(47%)を認め、IgEも著明な高値(39,399U/ml)を示した。喘息の既往、胆管生検所見、好酸球数、IgE値増加と主要所見を認めたためCSSと

考えた。完全には胆管炎を否定できないが肝内胆管には全肝ドレナージを施行し、それでも高熱が続き全身状態が悪化したため手術は断念し、アレルギー専門医と相談の上ステロイド療法を開始した。

治療後画像所見：CT 上肝内胆管の拡張は認めず、磁気共鳴胆管造影(magnetic resonance cholangiopancreatography, MRCP)では右肝管と総胆管と交通を認め、左肝管は拡張もなくスムーズとなった(図4)。

臨床経過：好酸球、IgEはステロイドの開始により著明に減少し、呼吸症状も著明に改善した。ビリルビンも、ERBD、PTCDを抜去後約半年間は正常範囲内であった(図5)。しかし、その後骨髄炎を発症して亡くなられた。

### 考 察

CSSはアレルギー性肉芽腫性血管炎とも呼ばれ、わが国では1998年に厚生労働省特定疾患調査研究班による診断基準が提唱されている<sup>2)</sup>。それによると、(1)気管支喘息あるいはアレルギー性鼻炎、(2)好酸球数増加、(3)血管炎による症状を主要臨床所見とし、他にも多彩な症状を呈する。臓器症状の頻度として多発单神経炎はほぼ必発し、皮膚(紫斑、皮下出血など)、消化管(出血、腹膜炎など)、心(心不全、梗塞、心包炎など)、筋炎、肺(間質性肺炎、胸膜炎など)、関節炎の頻度が

高い。今回の症例は主要臨床所見である(1), (2)を認めしており、胆管狭窄という形で(3)が発症した。腹部症状に関連するものとして消化管穿孔、胃腸炎、胆囊炎などの報告は散見されるが、われわれが検索した限り胆管狭窄をきたした報告は認めなかった。また臨床経過の特徴として(1), (2)が先行し、(3)が発症した。CSSの主要組織所見は、好酸球浸潤を伴う細小血管の肉芽腫性、またはフィブリノイド壊死性血管炎と血管外肉芽腫の存在であるが、生検で血管炎や肉芽腫を認める例は約27%にすぎない<sup>3)</sup>。胆管生検では好酸球浸潤のある血管炎の所見であり、参考となる検査所見として白血球数増加、血清IgE増加を認めたがMPO-ANCA、リウマトイド因子は陰性であった。以上より胆管狭窄を血管炎による症状ととらえるかは問題ではあるが、われわれはCSSと考えた。

鑑別診断としてまずPSCが考えられたが、LaRussoら<sup>4)</sup>の基準によるとPSCは典型的な胆管像である肝内あるいは肝外胆管のび慢性狭窄を示すものが大半であり、また特徴的な所見であるp-ANCAの陽性率は82%と報告されているが<sup>5)</sup>、この症例では陰性であった。しかし、Caroliら<sup>6)</sup>は病変部の存在範囲によりPSCをび漫型と限局型に分類したが、限局型PSCに関しては否定できない。次にhypereosinophilic syndrome(以下、HESと略記)に関しては、アレルギー疾患や寄生虫疾患などの明らかな原因がなく好酸球増加が6ヵ月以上持続するというChusidら<sup>7)</sup>の診断基準を満たしていない。しかし、Shimomuraら<sup>8)</sup>は末梢好酸球と血清IgEの増加を伴うPSCを報告し、一部のPSCはHESの病態により説明されうるとしており、HESによる胆管狭窄も否定できない。また、組織学的にCSSとHESとの区別はしばしば困難であり、臨床症状および臨床経過の慎重な経過観察が診断に重要であるといわれている。また、Butlerら<sup>9)</sup>は一過性の閉塞性黄疸と胆管炎、末梢血の好酸球增多、胆囊、リンパ節などの好酸球浸潤を認めた1例を好酸球性胆管炎として報告している。したがって、良性の胆道狭窄をきたす疾患の中に好酸球增多を伴うものは幾つか認められ、上記の疾患を考慮する必要がある。最後に肝門部胆管癌であるが、胆管生検は2回施行していずれも悪性所見が認められなかつたが、完全には否定できない。

CSSの治療はステロイドの投与であり、大量投与を行うと大半の臓器症状は数週間以内に寛解する。長澤らの報告でも本邦におけるCSS患者74例での死亡率は19%であり、予後は著しく悪いわけではない<sup>10)11)</sup>。こ

の症例に関しても好酸球、IgEはすみやかに改善し、胆管狭窄も解除されドレナージチューブを抜去できた。

## 結語

今回われわれはCSSによる胆管狭窄と考えられた極めて稀な症例を経験した。胆管生検を施行しても悪性所見は認められなかつたが、確実に肝門部胆管癌ではないと断言できるわけではない。残念ながら他病死されたが、そうでなければ外来での厳重な経過観察が必要であったと考えられた。

## 文献

- 1) Churg J, Strauss L: Allergic granulomatosis, allergic angiitis, and periarteritis nodosa. Am J Pathol 27: 277, 1951
- 2) 橋本博史：アレルギー性肉芽腫性血管炎、難治性血管炎の診療マニュアル。厚生科学研究特定疾患対策研究事業難治性血管炎に関する調査研究班、東京、2002, p27-29
- 3) 小泉富美朝：アレルギー性肉芽腫性血管炎の診断手引き。病理と臨 8: 1357-1364, 1990
- 4) LaRusso NF, Wiesner RH, Lodwig J, et al: Current concepts: primary sclerosing cholangitis. N Engl J Med 310: 899-903, 1984
- 5) Seibold F, Slametschka D, Gregor M, et al: Neutrophil autoantibodies: a genetic marker in primary sclerosing cholangitis and ulcerative colitis. Gastroenterology 107: 532-536, 1994
- 6) Caroli J, Rosuer D: Cholangitis. Ed. by Bocks HL, Gastroenterology, vol 3, Saunders, Philadelphia & London, 1976, p865-897
- 7) Chusid MJ, Dale DC, West BC, et al: The hypereosinophilic syndrome. Analysis of fourteen cases with review of the literature. Medicine 54: 1, 1975
- 8) Shimomura I, Takase Y, Matsumoto S, et al: Primary sclerosing cholangitis associated with increased peripheral eosinophils and serum IgE. J Gastroenterol 31: 737-741, 1996
- 9) Butler TW, Feintuch TA, Caine WP, et al: Eosinophilic cholangitis, lymphadenopathy, and peripheral eosinophilia: A case report. Am J Gastroenterol 80: 572-574, 1985
- 10) 長澤俊彦：アレルギー性肉芽腫性血管炎。アレルギー 40: 1-7, 1991
- 11) 橋本博史、長澤俊彦、安倍達也他：結節性多発動脈炎、ウエグナー肉芽腫症、アレルギー性肉芽腫性血管炎、悪性関節リウマチの臨床像と経過、予後の比較。リウマチ 28: 145-155, 1998

## A CASE SUGGESTIVE OF CHURG STRAUSS SYNDROME WITH BILE DUCT STENOSIS

Suguru YAMADA, Tetsuya KANEKO, Hiroyuki SUGIMOTO,  
Shuji NOMOTO and Akimasa NAKAO

Department of Gastroenterological Surgery, Graduate School of Medicine, University of Nagoya

A 64-year-old man complaining of jaundice, who was found having dilatation of the intrahepatic ducts by abdominal CT scan and was indwelt percutaneous transhepatic biliary drainage elsewhere, was referred to the hospital with a suspicion of hilar cholangiocarcinoma. Sufficient drainage to relieve jaundice and a bile duct biopsy were performed after admission. The biopsy showed only vasculitis, but no malignant findings. Because the laboratory data highlighted increases in eosinophil count and IgE and he had suffered from asthma, we thought that the bile duct stenosis might occur due to Churg-Strauss syndrome. We considered to operate on him because a possibility of hilar cholangiocarcinoma could not be ruled out, but started conservative therapy as his general condition was getting worse due to pneumonia and cholangitis. The bile duct stenosis was gradually relieved by steroid therapy, and the drainage tubes were removed. Thereafter the dose of steroid was gradually decreased. There have been no cases of bile duct stenosis due to Churg-Strauss syndrome, and we report the case with a review of the literature.

---

日本臨牀 第64巻・第3号(平成18年3月号) 別刷

## 癌に対するウイルス療法

下山理史 中尾昭公