

## 十二指腸粘膜下腫瘍との鑑別が困難であった Groove Pancreatitis の1例

<sup>1</sup> 聖隷浜松病院外科<sup>2</sup> 聖隷浜松病院病理診断科<sup>3</sup> 東京女子医科大学医学部外科学（第2）講座

ハヤミ	マサル	ウシダ	シンイチ	ナカムラ	トオル
速水	克 <sup>1</sup>	牛田	進一郎 <sup>1</sup>	中村	徹 <sup>1</sup>
シミズ	シンイチ	オオツキ	ヨシロウ	カメオカ	シンゴ
清水	進一 <sup>2</sup>	大月	寛郎 <sup>2</sup>	亀岡	信悟 <sup>3</sup>

(受理 平成26年8月22日)

## A Case of Groove Pancreatitis Mimicking Duodenal Submucosal Tumor

Masaru HAYAMI<sup>1</sup>, Shinichiro USHIDA<sup>1</sup>, Toru NAKAMURA<sup>1</sup>,  
Shinichi SHIMIZU<sup>2</sup>, Yoshiro OTSUKI<sup>2</sup> and Shingo KAMEOKA<sup>3</sup><sup>1</sup>Department of Surgery, Seirei Hamamatsu General Hospital<sup>2</sup>Department of Pathology, Seirei Hamamatsu General Hospital<sup>3</sup>Department of Surgery II, Tokyo Women's Medical University

A 44-year-old man with a history of alcoholism suffered from upper abdominal pain for 3 months and was referred to a local hospital. Physical examination showed tenderness in the right hypochondrium, and abdominal ultrasonography revealed a mass shadow 5 cm in diameter. Upper gastrointestinal endoscopy and gastroduodenography showed stenosis with multinodular elevated lesions, suggesting duodenal submucosal tumor. Contrast-enhanced computed tomography of the abdomen showed an irregularly shaped mass, 7 cm in diameter, with calcification and cystic change between the second portion of the duodenum and the pancreatic head. Because mucosal biopsy showed no malignancy and imaging findings failed to identify any neoplastic changes in the common bile duct or pancreatic duct, duodenal submucosal tumor was suspected. During laparotomy, an elastic, hard mass was palpable between the second portion of the duodenum and the pancreatic head, and marked inflammatory changes were apparent around the mass. Subtotal stomach-preserving pancreaticoduodenectomy was therefore performed. Histological findings showed fibrosis and chronic inflammation between the duodenal wall and pancreas without any evidence of malignancy, leading to a diagnosis of groove pancreatitis. Groove pancreatitis is a localized chronic pancreatitis affecting the pancreatic groove. Due to the similar radiological findings and a lack of awareness of this entity, it is challenging to differentiate from malignant tumor diagnostically. We report a case of groove pancreatitis mimicking duodenal submucosal tumor and discuss its characteristic appearance with consideration of the literatures.

**Key Words:** groove pancreatitis, groove pancreatic carcinoma

## 緒 言

Groove pancreatitis（以下、GP）は、十二指腸下行部、膵頭部ならびに総胆管の間の groove 領域に

限局した慢性膵炎である<sup>1)2)</sup>。男性の大酒家に好発し、その発症部位の特殊性から特徴的な臨床所見、画像所見を示す一方で悪性腫瘍との鑑別が困難な病態で

ある<sup>3)</sup>. 今回われわれは十二指腸粘膜下腫瘍との鑑別が困難であったGPの1例を経験したので、文献的考察を含めて報告する。

### 症 例

患者：44歳，男性.

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし.

主訴：上腹部痛.

現病歴：3ヵ月前から続く食後の上腹部痛を主訴に前医を受診した. 腹部超音波検査で右季肋下に径5 cmの腫瘍を指摘され，同部に圧痛を認めた. 上部内視鏡検査で十二指腸内腔に突出する隆起性病変を認め，十二指腸腫瘍が疑われ当院紹介となった.

Table 1 Laboratory data on first visit

・ Hematology			
WBC	8,270 /mm <sup>3</sup>	AMY	204 U/l
RBC	373 × 10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	P-AMY	176 IU/l
Hb	7.6 g/dl	LYP	243 IU/l
Ht	28.4 %	BUN	5 mg/dl
Plat	51.3 × 10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	Cr	0.62 mg/dl
・ Biochemistry			
TP	7.4 g/dl	Na	139 mEq/l
Alb	3.9 g/dl	K	4.5 mEq/l
T.Bil	0.4 mg/dl	Cl	103 mEq/l
AST	18 IU/l	Glu	95 mg/dl
ALT	18 IU/l	HbA1c	5.2 %
LDH	158 IU/l	CRP	0.1 mg/dl
γGTP	97 IU/l	・ Tumor markers	
CK	49 IU/l	CEA	3.9 ng/ml
		CA19-9	<2.0 U/ml

生活歴：〔喫煙〕20本/日×30年間. 〔飲酒〕ウイスキー 200 ml/日×25年間. 焼酎 300 ml/日×1年間.

来院時現症：腹部は平坦，軟で，右季肋部に圧痛を認めた.

来院時血液検査 (Table 1)：貧血と膵酵素の上昇を認めたが，腫瘍マーカーの上昇など他に指摘できるような異常はなかった.

上部内視鏡検査および上部消化管造影 (Fig. 1)：十二指腸下行脚の膵側には，粘膜下腫瘍を疑わせる比較的やわらかい多結節状の隆起性病変を認め，内腔狭窄を来たしていた. 被覆粘膜の不整は軽度であり，粘膜面からの生検では中等度の炎症やそれに伴う上皮の反応性変化がみられたが，明らかな腫瘍性変化は認められなかった.

CTおよびMRI/MRCP (Fig. 2)：CTでは十二指腸下行脚左側を主座とし，内部に石灰化と嚢胞性変化を伴い，遅延性に造影される最大約7 cmの不整形腫瘍を認めた. MRIでは同腫瘍と膵との境界は保たれていると考えた. MRCPでは主膵管・総胆管に異常所見は認められず，十二指腸下行脚左側に多発嚢胞を認めた.

以上の所見から十二指腸粘膜下腫瘍の診断で手術を施行した.

手術所見 (Fig. 3)：十二指腸下行脚と膵頭部の間に一塊となった弾性硬の白色腫瘍を認め，周囲には炎症性変化が著明であった. 腫瘍を含め膵温存十二指腸部分切除を試みたが，腫瘍と膵の剝離はできな

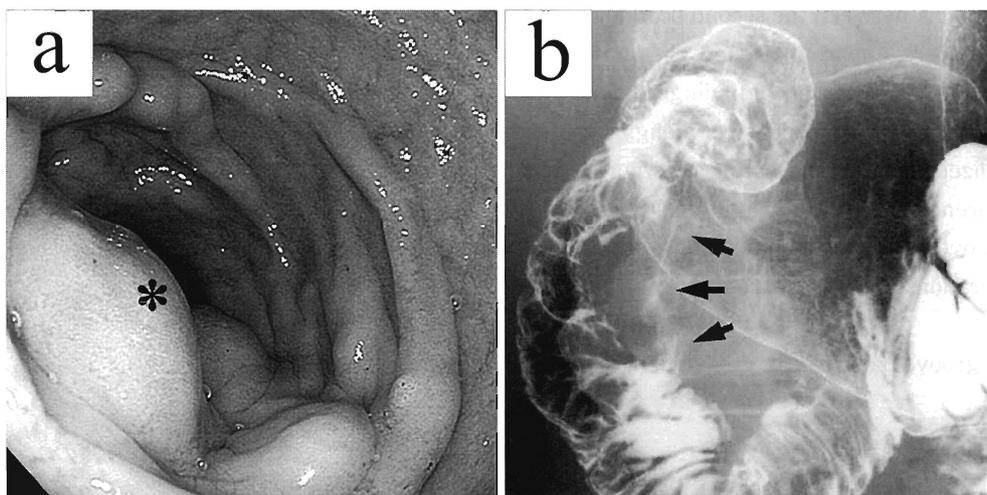


Fig. 1 Gastroduodenal endoscopy and gastroduodenography

- a) Gastroduodenal endoscopy shows stenosis of the second portion of the duodenum due to multinodular elevated lesions, suggesting submucosal tumor (\*).
- b) Gastroduodenography shows stenosis with multinodular elevated lesions on the pancreatic side of the second portion of the duodenum (arrows).

かったため、亜全胃温存膵頭十二指腸切除術を施行した。

**病理学的所見 (Fig. 4) :** 粘膜面には隆起性変化を認めたほか、白色腫瘍を含めて groove 領域と十二指腸壁には白色の線維性組織を認めた。groove 領域には軽度拡張した副膵管や散在性に嚢胞性変化も認められた。

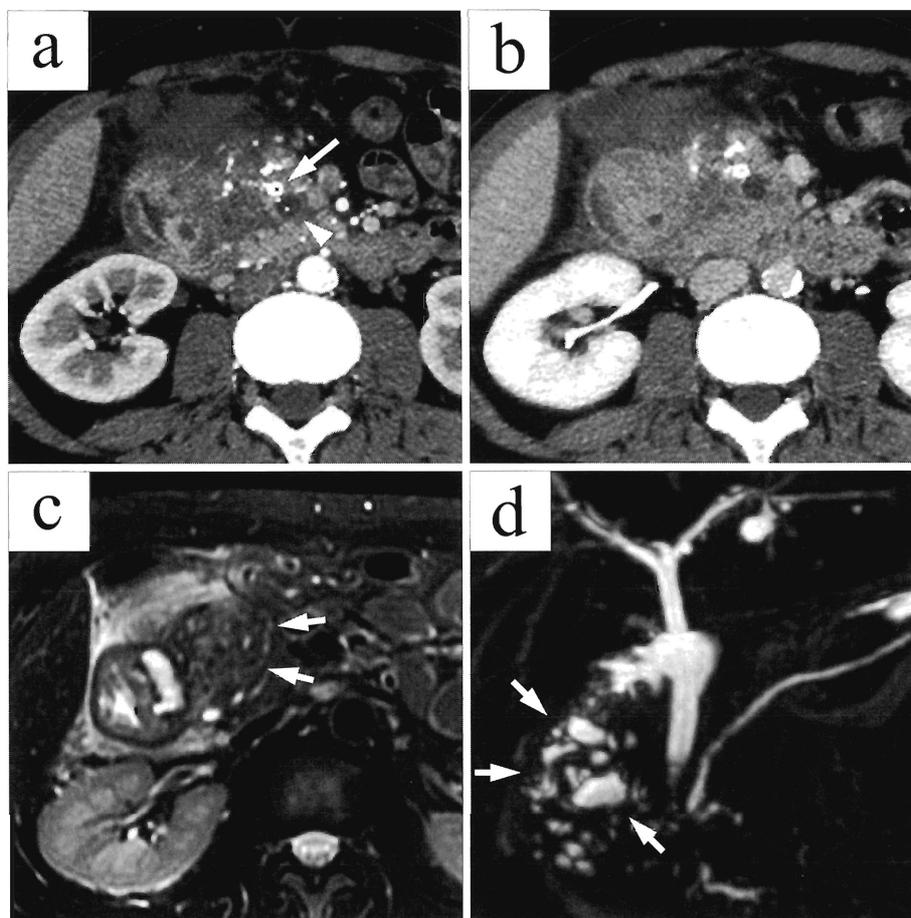
組織所見では、膵・groove 領域の著明な線維化を認めたほか、十二指腸にも粘膜下層主体に線維増生とリンパ球浸潤がみられ、これら線維化巣には偽嚢胞が散見された。主膵管や副膵管には石灰化を伴う濃縮した膵液を認めたが、主膵管、副膵管および総胆管を含めて腫瘍性変化は認められなかった。以上

の所見より GP と診断した。

術後経過は順調で第 13 病日に退院となった。

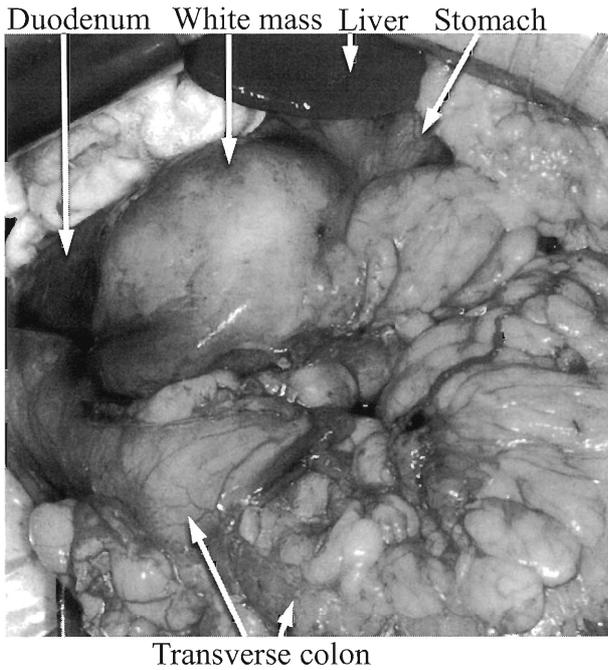
### 考 察

GP は 1973 年, Becker ら<sup>1)</sup>により十二指腸下行部, 膵頭部および総胆管の間の溝である groove 領域に限局した慢性膵炎として報告された。1982 年, Stole ら<sup>2)</sup>は慢性膵炎に対し膵頭十二指腸切除術を施行した 123 例を組織学的に検討し, 30 例 (24.4%) に本症を認め, 全例が男性で, 80% 以上が大酒家であったと報告している。発生機序については, 長期にわたる過度のアルコール摂取や喫煙が粘稠度の高い膵液分泌を促し, さらに増加したガストリンやコレシストキニンによる Brunner 腺過形成も加わり, 副膵管



**Fig. 2** CT and MRI/MRCP

- a) An irregularly shaped mass shows enhancement in the late arterial phase. The mass is 7 cm in diameter, with calcification (arrow) and cystic change (arrowhead), and is present on the left side of the second portion of the duodenum on CT.
- b) The irregularly shaped mass shows enhancement in the equilibrium phase on CT.
- c) MRI (T2-weighted) reveals the boundary between the irregularly shaped mass on the left side of the second portion of the duodenum and the pancreas (arrows).
- d) MRCP shows no abnormal findings in the main pancreatic duct or common bile duct. Multiple cystic lesions are present on the left side of the second portion of the duodenum (arrows).



**Fig. 3** Operative findings

An elastic, hard, white mass is seen between the second portion of the duodenum and the pancreatic head, and marked inflammatory changes are apparent around the mass.

領域での膵液流出障害により炎症を生じると考えられている。胆道系疾患、消化性潰瘍、副乳頭欠損、手術および外傷なども成因として挙げられている<sup>2)</sup>。

GP に特徴的な画像所見として、上部内視鏡検査における十二指腸下行脚の浮腫性狭窄<sup>4)</sup>や、CT での groove 領域の腫瘤状軟部組織の描出が挙げられる。ダイナミック CT および MRI での、線維化を反映した遅延性濃染所見も特徴的とされる<sup>5)6)</sup>。

組織学的には groove 領域に慢性膵炎による線維化がみられ、十二指腸には Brunner 腺の過形成や線維性増殖による粘膜・粘膜下層の肥厚を伴うことも多く、膵内、十二指腸壁内の偽嚢胞形成も特徴的とされる。石灰化は稀だが病歴が長い症例では認められることがある<sup>2)</sup>。

また胆道構造が比較的正常に保たれるのも本疾患に特徴的な所見である<sup>7)</sup>。これらの所見を反映し、十二指腸狭窄に伴う悪心嘔吐や体重減少、腹部の腫瘤触診などを呈する一方で黄疸の頻度は低いとされる<sup>2)</sup>。

本症例では主膵管および総胆管に異常所見を認めず、膵頭部に限局した腫瘤形成と十二指腸狭窄など GP を示唆する所見が認められていたにも関わらず、本症の診断に至らず、十二指腸粘膜下腫瘍を第

一に考えた。十二指腸粘膜下腫瘍には、gastrointestinal stromal tumor (GIST), neuroendocrine tumor (NET), リンパ腫等の鑑別が挙げられるが、画像所見上 GIST を最も疑った。消化管 GIST は通常境界明瞭な腫瘍であるが、腫瘍径の増大に伴い消化管外に突出し、腫瘍辺縁は結節状あるいは鋸歯状となり隣接臓器へ浸潤する。腫瘍内部は不均一な低吸収域を示し、石灰化、壊死、嚢胞形成も出現する<sup>8)</sup>。十二指腸 GIST においても同様の所見を呈する<sup>9)</sup>。

Retrospective に見ると、CT 上腫瘍の境界が不明瞭であること、著明な炎症性変化の存在、石灰化や嚢胞性変化が腫瘍内だけでなく膵内にも存在することなど GIST との相違点が挙げられた。鑑別を困難にしたのは、MRI 上で腫瘍と膵組織の間に連続性を指摘できなかったことがあるが、それ以上に我々の GP に対する認識度の低さが要因であったと考える。本症は発症頻度が低く稀な疾患であるが、その病態を認識しておくことで鑑別疾患に挙げることが可能であったと反省させられた。

本疾患に対する治療前診断率はその疾患概念の浸透に伴い近年向上していると思われるが、一方で膵癌などの悪性腫瘍との鑑別は依然困難である。2003 年に定義された groove pancreatic carcinoma (以下、GPC)<sup>3)</sup>は GP と臨床的および画像的特徴が類似しており、両者の混在した病態も存在する<sup>10)~15)</sup>。GPC は腫瘍内に嚢胞性病変は伴わないことが多いが<sup>3)</sup>、GP で嚢胞性病変が顕著でない例などは両者の鑑別が困難となる。山澤ら<sup>16)</sup>の副膵管原発膵癌本邦報告 10 例のまとめでも、7 例は GP を含む炎症性疾患との鑑別を要し、術前に副膵管癌と診断できた症例はなく、groove 領域の膵炎および膵癌の術前鑑別診断の難しさを指摘している。

GP に対する治療は従来外科的治療が行われることが多く、膵頭十二指腸切除術あるいは何らかのバイパス術が施行されてきた<sup>17)~21)</sup>。近年は保存的治療の報告も増加しており<sup>22)~24)</sup>、この中には内視鏡治療が有用であったとする報告も認められる<sup>25)~28)</sup>。本症例でも術前に GP の診断が成されていれば禁酒などの生活指導による保存的治療を試みる選択肢があったと思われる。しかし保存的治療でも改善が見られない場合や、悪性腫瘍との鑑別が困難な場合は依然手術が必要とされており<sup>18)29)</sup>、本症例でも十二指腸粘膜下腫瘍を念頭に置いていたこともあり、術前に GP を疑った場合でも手術を選択したと考える。

GP を疑う症例に対しバイパス術や保存的治療を

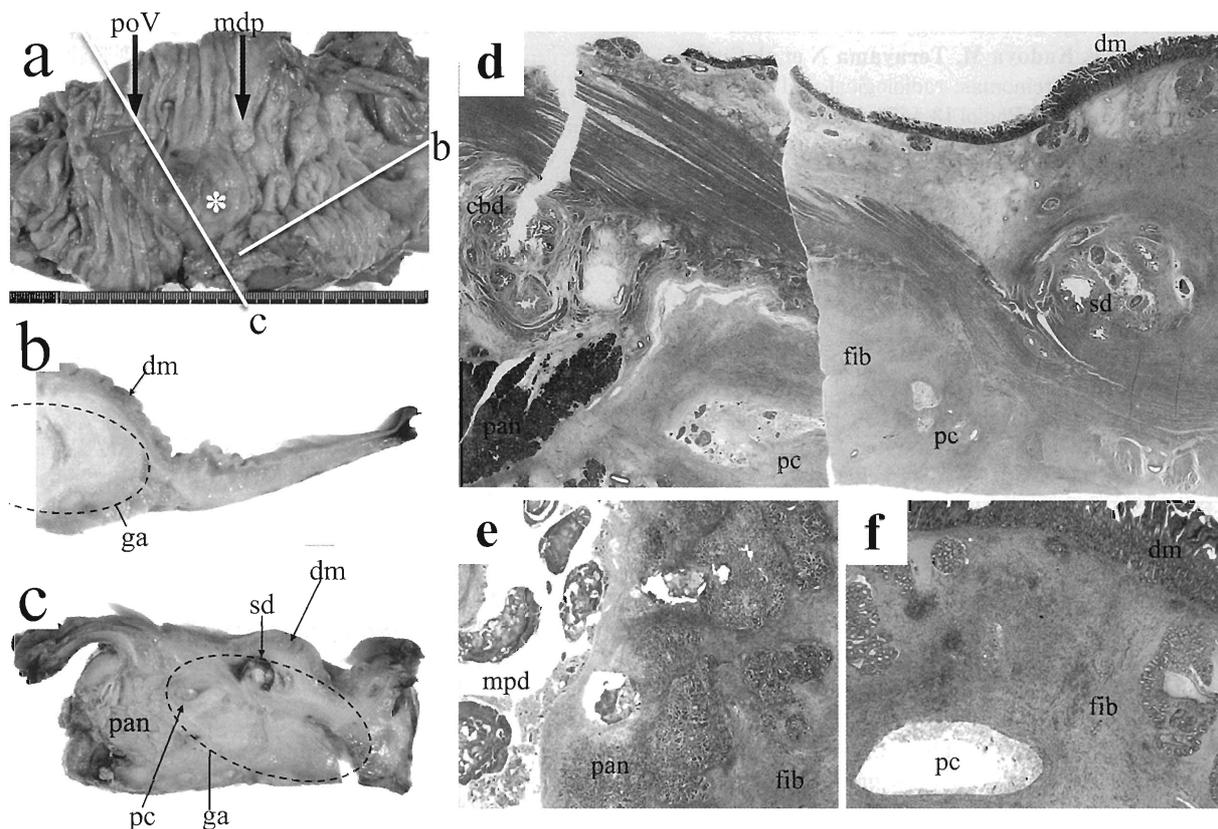


Fig. 4 Histological findings

- a) Resected specimen. An elevated lesion is apparent on the duodenal mucosa (\*).
- b) Cut surface on line b, showing a whitish, fibrotic lesion in the groove area.
- c) Cut surface on line C, showing pancreatic tissue and the whitish, fibrotic lesion in the groove area. The mildly dilated duct of Santorini and pseudocysts are also confirmed in the groove area.
- d) Low-power view of the lesion shows marked fibrosis of the groove area and the duct of Santorini contains inspissated pancreatic juice with calcification (hematoxylin and eosin (HE) staining).
- e) Marked fibrosis in the pancreatic parenchyma and inspissated pancreatic juice with calcification in the main pancreatic duct are identified (HE staining,  $\times 30$ ).
- f) Duodenal wall shows marked thickening with fibrous proliferation and lymphocytic infiltration mainly in the submucosa. The duodenal wall also contains pseudocysts (HE staining,  $\times 15$ ).
- poV, papilla of Vater; mdp, minor duodenal papilla; ga, groove area; dm, duodenal mucosa; pan, pancreas; pc, pseudocyst; cbd, common bile duct; fib, fibrosis; sd, duct of Santorini; mpd, main pancreatic duct.

選択する場合には、悪性との鑑別が極めて困難であることから、その可能性が否定できない場合には臍頭十二指腸切除術を行うことも考慮すべきと考える。

#### 結 論

十二指腸粘膜下腫瘍との鑑別が困難であった GP の 1 例を経験した。大酒家に生じた十二指腸狭窄を伴う臍頭十二指腸病変では GP も念頭におく必要がある。この場合、自験例のような十二指腸粘膜下腫瘍や GPC などの腫瘍性変化との臨床的鑑別が難し

い場合があり、保存的治療が奏功しない症例や悪性腫瘍が否定できない場合は積極的に手術を検討すべきである。

開示すべき利益相反はない。

#### 文 献

- 1) **Becker V**: Bauchspeicheldruse. In Spezielle Pathologische Anatomie, Bd VI, Springer, Berlin, Heidelberg, New York (1973)
- 2) **Stole M, Weiss W, Volkholz H et al**: A special form of segmental pancreatitis: "Groove Pancreati-

- tis". *Hepatogastroenterology* **29**: 198–208, 1982
- 3) **Gabata T, Kadoya M, Terayama N et al**: Groove pancreatic carcinomas: radiological and pathological findings. *Eur Radiol* **13**: 1679–1684, 2003
  - 4) **Mohl W, Hero-Gross R, Feifel G et al**: Groove pancreatitis: an important differential diagnosis to malignant stenosis of the duodenum. *Dig Dis Sci* **46**: 1034–1038, 2001
  - 5) **Itoh S, Yamakawa K, Shimamoto K et al**: CT findings in groove pancreatitis: correlation with histopathological findings. *J Comput Assist Tomogr* **18**: 911–915, 1994
  - 6) **Irie H, Honda H, Kuroiwa T et al**: MRI of groove pancreatitis. *J Comput Assist Tomogr* **22**: 651–655, 1998
  - 7) **小林道也, 荒木京二郎, 中村生也ほか**: 十二指腸狭窄を呈した groove pancreatitis の 1 例. *日消外会誌* **28**: 2290–2294, 1995
  - 8) **西田俊朗**: CT・MRI による臨床診断. 「GIST の診断と治療 実践マニュアル」GIST 研究会, pp20–31, エルゼビア・ジャパン, 東京 (2006)
  - 9) **Kim HC, Lee JM, Son KR et al**: Gastrointestinal stromal tumors of the duodenum: CT and barium study findings. *Am J Roentgenol* **183**: 415–419, 2004
  - 10) **Tan CH, Chow PK, Thng CH et al**: Pancreatic adenocarcinoma that mimics groove pancreatitis: Case report of a diagnostic dilemma. *Dig Dis Sci* **51**: 1294–1296, 2006
  - 11) **Aimoto T, Uchida E, Nakamura Y et al**: Clinicopathologic study on pancreatic groove carcinoma. *Pancreas* **33**: 255–259, 2006
  - 12) **大西佳文, 山崎 哲, 鈴木智哉ほか**: Groove 膵炎と鑑別困難であった膵癌の 1 例. *肝胆膵治研誌* **6**: 41–48, 2008
  - 13) **目黒敬義, 山本 毅, 西岡可奈ほか**: 若年発症した pancreatic groove carcinoma の 1 例. *日消誌* **105**: 1078–1086, 2008
  - 14) **Ishigami K, Tajima T, Nishie A et al**: Differential diagnosis of groove pancreatic carcinomas vs. Groove pancreatitis: Usefulness of the portal venous phase. *Eur J Radiol* **74**: e95–e100, 2010
  - 15) **Malde DJ, Oliveira-Cunha M, Smith AM**: Pancreatic carcinoma masquerading as groove pancreatitis: Case report and review of literature. *JOP* **12**: 598–602, 2011
  - 16) **山澤邦宏, 寺島裕夫, 横島徳祐ほか**: Groove pancreatitis との鑑別に苦慮したまれな副膵管領域原発膵癌の 1 切除例—自験例を含めた本邦報告 10 例のまとめと共に—. *膵臓* **22**: 65–73, 2007
  - 17) **宜保淳也, 伊藤鉄英, 河邊 顕ほか**: 女性に発症し, pure form から segmental form に進展した Groove pancreatitis の一例. *臨と研* **82**: 127–131, 2005
  - 18) **竹中芳治, 春日井尚, 宮島伸宜ほか**: 全胃温存膵頭十二指腸切除術を施行した groove pancreatitis の 1 例. *日臨外会誌* **64**: 2855–2860, 2003
  - 19) **友松宗史, 安井智明, 生田真一ほか**: 門脈閉塞を伴った Groove pancreatitis に対し幽門側胃切除, Roux-en Y 再建術を施行した 1 例. *日消外会誌* **44**: 991–996, 2011
  - 20) **藤島則明, 浜口伸正, 谷田信行ほか**: 胃空腸吻合を行った groove pancreatitis の 1 例. *高知医師会医誌* **16**: 248–253, 2011
  - 21) **矢吹清隆, 前川武男, 佐藤浩一ほか**: 十二指腸狭窄を呈した groove pancreatitis の 1 例. *Dig Endosc* **12**: 345–349, 2000
  - 22) **大野敬祐, 木村弘通, 小井戸一光ほか**: 保存的治療により軽快した segmental groove pancreatitis の 1 例. *膵臓* **17**: 522–530, 2002
  - 23) **須藤 訓, 奥秋 靖, 松岡美佳ほか**: 保存的治療が奏効した groove pancreatitis pure type の 1 例. *日消誌* **100**: 884–888, 2003
  - 24) **元好朋子, 阪上順一, 片岡慶正ほか**: 非典型的な所見を呈した groove pancreatitis の 2 例. *日消誌* **101**: 622–628, 2004
  - 25) **松村英仁, 木村純子, 大野良太ほか**: Helical CT が診断に有用であった groove pancreatitis の 1 例. *映像情報 Med* **34**: 876–877, 2002
  - 26) **法村大輔, 大場一生, 水田陽平ほか**: 発症初期から進展を観察した groove pancreatitis の 1 例. *日消誌* **105**: 1496–1503, 2008
  - 27) **柿崎泰明, 牧野直彦, 戸澤智浩ほか**: EUS ガイド下膵仮性嚢胞ドレナージが奏効した groove pancreatitis の 1 例. *Gastroenterol Endosc* **55**: 1673–1679, 2013
  - 28) **伊佐山浩通, 山本夏代, 水野 卓ほか**: Groove pancreatitis をめぐって Groove pancreatitis の治療. *胆と膵* **34**: 301–305, 2013
  - 29) **Sanada Y, Yoshida K, Itoh H et al**: Groove pancreatitis associated with true pancreatic cyst. *J Hepatobiliary Pancreat Surg* **14**: 401–409, 2007