

症例報告

十二指腸乳頭部に発生し閉塞性黄疸をきたした過誤腫の1例

東京女子医科大学附属第二病院 外科（指導：梶原哲郎教授）

¹⁾同 中央検査部²⁾同 病院病理部

窪田 公一・熊沢 健一・小林 敏・細川 俊彦
 塩沢 俊一・押部 信之・土屋 玲・増田 俊夫
 芳賀 駿介・梶原 哲郎・大井 至¹⁾・相羽 元彦²⁾

（受付 平成8年10月14日）

緒言

今回、われわれは十二指腸乳頭部に発生し閉塞性黄疸をきたした過誤腫の1例を経験した。十二指腸良性腫瘍のうち乳頭部での発生は本邦で185例が報告されている。多くは腺腫であり、過誤腫は1995年までの文献を検索したかぎりでは海外でも数例の報告¹⁾²⁾をみるだけで本邦でははじめての症例であった。

そこで、十二指腸乳頭部に発生した良性腫瘍の報告例を集計し、若干の文献的考察を加えて自験例を報告する。

症例

患者：56歳，女性。

主訴：肝機能障害。

家族歴：特記すべきことはない。

既往歴：1982年，僧帽弁置換術。

現病歴：1991年にHCV抗体陽性を指摘され、1993年よりC型慢性肝炎で通院中であった。1994年12月の腹部超音波検査で総胆管の拡張とその末端部に腫瘍を指摘された。腹痛，発熱，下血など

の症状はなかったが精査・加療目的で12月22日に入院となった。

入院時現症：身長162cm，体重53kg，体温36.2°C，血圧126/70mmHg，脈拍72/min不整。眼瞼結膜に貧血はなく，眼球結膜に黄疸はなく，表在リンパ節は触知しなかった。胸腹部は胸部に手術痕を認める以外に異常はなかった。

入院時検査成績：末梢血所見には異常を認めなかったが，血清生化学所見では肝・胆道系酵素に軽度の上昇を認めた。腫瘍マーカーに異常はなかった（表1）。

腹部超音波検査所見：拡張した総胆管とその末端部にわずかに高エコーで音響陰影を伴わない16mm大の腫瘍像を認めた（図1）。

腹部CT検査所見：膵内胆管の拡張とその中に辺縁明瞭で高濃度領域を示す8mm大の腫瘍像を認めた（図2）。

上部消化管内視鏡検査所見：Vater乳頭部に大きき15mm大，硬度軟，表面は比較的平滑で潰瘍形成のない有茎性ポリープ様の不整形腫瘍を認め

Koichi KUBOTA, Kenichi KUMAZAWA, Satoru KOBAYASHI, Toshihiko HOSOKAWA, Shunichi SHIOZAWA, Nobuyuki OSHIBE, Akira TSUCHIYA, Toshio MASUDA, Shunsuke HAGA, Tetsuro KAJIWARA, Itaru OHI¹⁾ and Motohiko AIBA²⁾ (Department of Surgery, ¹⁾Central Clinical Laboratory and ²⁾Department of Surgical Pathology, Tokyo Women's Medical College Daini Hospital): A case of hamartoma of the papilla of vater with obstructive jaundice

表1 入院時検査成績

WBC	5,000 /mm ³	S-Amy	130 IU/l
Hb	13.7 g/dl	T-Bil	1.0 mg/dl
Plt	20×10 ⁴ /mm ³	D-Bil	0.3 mg/dl
T.P	8.5 g/dl	BUN	7.4 mg/dl
GOT	66 IU/l	Cr	0.58 mg/dl
GPT	84 IU/l	CEA	0.9 ng/ml
LDH	283 IU/l	AFP	4.4 ng/ml
ALP	330 IU/l	CA19-9	<6 U/ml
γ-GTP	350 IU/l	FBS	99 mg/dl
LAP	315 IU/l	Feces : Orthotolidine	(-)

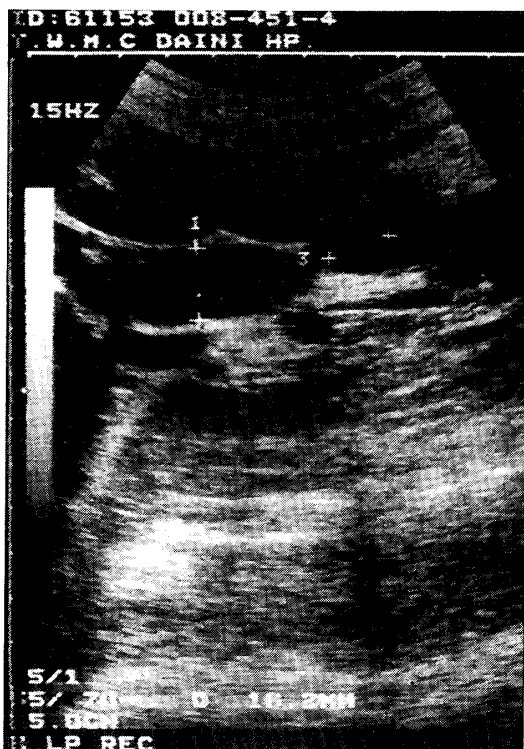


図1 腹部超音波検査

拡張した総胆管とその末端部に高エコーで音響陰影を伴わない腫瘍像を認めた。

た。乳頭開口部はその腫瘍内に認められた。同時に施行した組織生検では腺腫と診断された(図3)。

ERCP 検査所見：拡張した総胆管の末端部に辺縁不整で分葉乳頭状の腫瘍が疑われる陰影欠損像を認め、さらに胆管への進展が示唆された。しかし、膵管に異常所見は認められなかった(図4)。

以上の検査所見から十二指腸乳頭部腺腫と診断された。しかしその後、総ビリルビン5.5mg/dl、直接ビリルビン2.9mg/dlと閉塞性黄疸の発生を

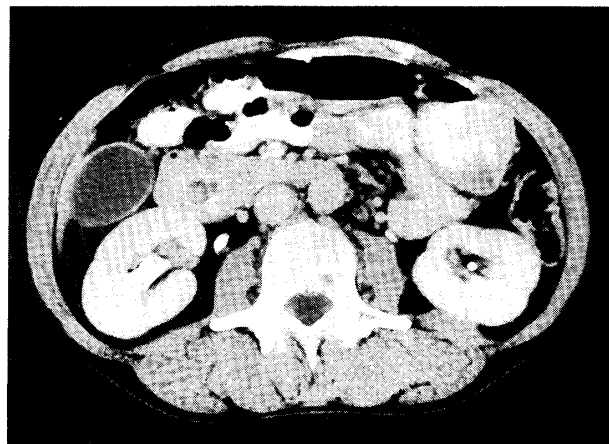


図2 腹部CT検査

膵内胆管の拡張とその中に辺縁明瞭で高濃度領域を示す腫瘍像を認めた。

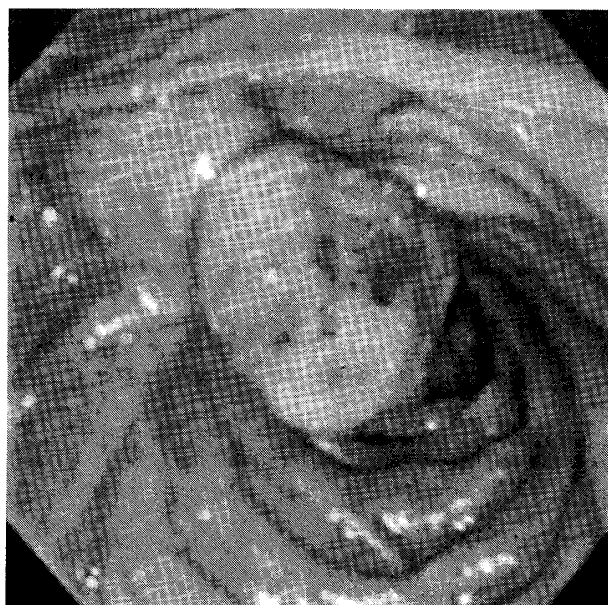


図3 上部消化管内視鏡検査

Vater 乳頭部に表面が比較的平滑な有茎性ポリープ様の不整形腫瘍を認めた。

認めた。血清アマラーゼの上昇は認めなかったが、腺腫内癌も考慮するとともに総胆管内に腫瘍が占拠していることから、1995年1月20日幽門輪温存膵頭十二指腸切除術を行った。

摘出標本肉眼所見：十二指腸乳頭部に23×20×18mm大のポリープ様腫瘍を認め、これは十二指腸粘膜側から胆管上皮側をまたぐように存在していた。この腫瘍の性状は不整形、硬度軟、表面絨毛状、色調は周囲の正常十二指腸粘膜と同じで



図4 ERCP検査

拡張した総胆管の末端部に辺縁不整で分葉乳頭状の陰影欠損像を認め、腫瘍が疑われた。しかし、膵管に異常所見はなかった。

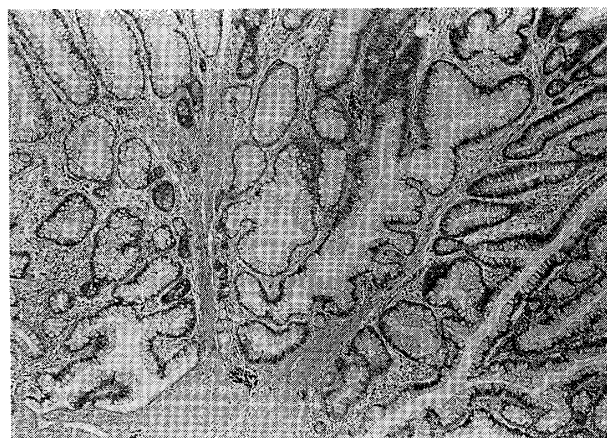


図5 病理組織像

上：腫瘍はポリープ様に十二指腸乳頭部粘膜より乳頭状の増殖を示していた (HE染色, $\times 2.5$)。

下：腫瘍は杯細胞や吸収細胞からなる絨毛腺癌の増生が主体であるが、平滑筋線維や Paneth cell も間質部に認められた (HE染色, $\times 5.0$)。

あった。

病理組織学的所見(図5)：腫瘍はポリープ様に十二指腸乳頭部粘膜より乳頭状の増殖を示していた(図5上)。組織学的には腫瘍は杯細胞や吸収細胞からなる絨毛腺窩の増生が主体であるが、さらに十二指腸粘膜筋板由来の平滑筋線維や Paneth cell が間質部に認められ、十二指腸由来の過誤腫と診断された(図5下)。また、場所によっては異型はないが楕円形の核が重積性に配列する腺管が乳頭状に増生していた。

術後経過：経過良好にて第31病日に退院、現在に至っている。

考 察

近年、内視鏡検査の進歩・普及により十二指腸病変の報告例は増加しているが、依然として十二指腸原発の良性腫瘍は希である。発生頻度は Darling ら⁴⁾, Ebert ら⁵⁾, Raiford ら⁶⁾によれば0.003から0.02%程度といわれ、発生部位別頻度は竹本ら⁷⁾によれば球部66%, 下行部32%, 水平部2%といわれている。そのうち、十二指腸乳頭部に発生した良性腫瘍の報告例は本邦では1961年の河野

表2 十二指腸乳頭部良性腫瘍
(本邦報告例；1961～1995年)

	報告例	黄疸例
腺腫	140	33
Carcinoid	26	9
平滑筋腫	8	0
過形成	8	1
Brunner 腺腫	2	2
神経鞘腫	1	0
過誤腫	1	1
計	186	46

ら⁸⁾にはじまり、1995年までの検索において自験例を含めて186例の報告がみられた(表2)。大部分は腺腫であり、自験例の過誤腫は海外でも数例の報告¹²⁾をみるだけで本邦でははじめての症例

であった。

過誤腫とは構成成分は発生臓器のものであるものの構成のしかたに誤りがあり、限局性の腫瘍状を示したものである。自験例では杯細胞や吸収細胞からなる絨毛腺窩の増生が主体となり、さらに十二指腸粘膜筋板由来の平滑筋線維や Paneth cell が間質部に認められたことより十二指腸由来の過誤腫と診断された。この場合、Peutz-Jeghers 症候群でみられる消化管ポリポースの一部である可能性もあるが、現在までに他の消化管にポリープが全く認められず、皮膚粘膜の色素斑もみられず、家族歴にも特記すべきことがないことより否定された。また、Brunner 腺腫は以前には過誤腫と考えられたこともあったが、異型性のない Brunner 腺の結節性の増生からなる上皮のみの変化で Brunner 腺過形成というべきものである⁹⁾。したがって、水落ら¹⁰⁾の報告した十二指腸乳頭部 Brunner 腺腫も過誤腫とは異なるものと判断された。

次に、自験例を含めた十二指腸乳頭部良性腫瘍の本邦報告186例を集計した。年齢、性別の記載のある165例をみると年齢は27～95歳（平均59歳）、男女比は1.5：1であった。臨床症状は137例に記載され、腹痛84例、発熱31例、下血・血便10例の順であった。また、閉塞性黄疸については169例に記載があり、黄疸を認めた症例は46例（27%）であった（表2）。腹痛、黄疸、発熱は乳頭部の器質的障害による胆汁うっ滞、胆道感染に起因する症状であり、下血・血便はおもに平滑筋腫からの出血であった。そして、腫瘍の大きさは111例に記載され、3～80mm（平均28mm）であった。閉塞性黄疸と腫瘍の大きさとの関係では、黄疸例で平均26.4mm、無黄疸例で平均27.7mmであり、閉塞性黄疸の発生は腫瘍の大きさからは予測できないと思われた。

十二指腸乳頭部腫瘍の存在診断は X 線学的、内視鏡的に比較的容易であるが、確定診断のためには組織生検による診断が心要となる。しかし、粘膜下腫瘍や非上皮性腫瘍の場合、術前に確定診断をつけることは必ずしも容易ではない。とくに平滑筋腫と平滑筋肉腫との鑑別には組織生検による

診断自体も難しいといわれている¹¹⁾。さらには腺腫と腺癌に関連した腺腫内癌の場合¹²⁾や多様な組織から構成される過誤腫の場合⁹⁾には、生検標本が必ずしも腫瘍全体を代表しないこともあり、組織生検だけから確定診断をつけることは困難であると思われた。自験例においても腫瘍の場所によっては異型のない腺管の乳頭状増生を認めており、このために組織生検では腺腫と診断されたものと考えられた。

したがって、術前に悪性を否定しきれない場合が多く、治療の記載がある158例のうち幽門輪温存を含めた臍頭十二指腸切除が66例（41.8%）に行われていた。とくに悪性を疑うも組織生検で断定しえない場合で閉塞性黄疸の発生を認めた場合には、幽門輪温存を含めた臍頭十二指腸切除を考慮すべきであるといわれている¹²⁾。また、経十二指腸的乳頭全切除も67例に行われていたが、切除範囲に限界があるので病変が乳頭部をこえて胆管に及ぶものや、確実に悪性を否定できないものは適応とにくい¹²⁾。自験例では閉塞性黄疸の発生を認めたことよりも、総胆管内に腫瘍が占拠していたために確実な切除の方法として幽門輪温存臍頭十二指腸切除を選択した。

そこで最後に閉塞性黄疸の発生と癌の関連をみてみた。十二指腸乳頭部に発生する腫瘍性病変の中では腺腫内癌を含めて癌が最も多く、本邦における乳頭部癌の発生率は剖検例の0.2%といわれ¹³⁾、その58%に閉塞性黄疸を認めることが推定されている¹⁴⁾。一方、腺腫の発生率は乳頭部癌の10%にすぎないといわれている¹⁵⁾。したがって、十二指腸乳頭部良性腫瘍186例中140例（75%）を占める腺腫を基に計算してみると、閉塞性黄疸例のうち約96%が癌であることになり、閉塞性黄疸の発生は癌を考慮する根拠となりうると考えられた。

結 語

十二指腸乳頭部に発生し閉塞性黄疸をきたした過誤腫の1例を経験したので、十二指腸乳頭部良性腫瘍の報告例を集計し併せて報告した。

文 献

- 1) Shyung LR, Lin SC, Yang KC et al: Hamar-

- toma of the ampulla of vater. Chin J Gastroenterol 9 : 220-224, 1992
- 2) **Roe M, Greenough WG**: Marked hypervascularity and arteriovenous shunting in acute pancreatitis. Radiology 113 : 47-48, 1974
 - 3) 日本胆道外科研究会編：胆道癌取扱い規約，第3版，pp36-42, 金原出版，東京，(1993)
 - 4) **Darling RC, Welch CE**: Tumors of the small intestine. N Engl J Med 260 : 397-407, 1959
 - 5) **Ebert RE, Parkhurst GF, Melendy OA et al**: Primary tumors of the duodenum. Surg Gynecol Obstet 97 : 135-139, 1953
 - 6) **Raiford TS**: Tumors of the small intestine. Arch Surg 25 : 122-177, 321-335, 1932
 - 7) 竹本忠良, 山田明美：消化管の X 線，内視鏡診断。綜合臨 20 : 2309-2313, 1971
 - 8) 河野 実, 武正勇造, 方波見猛ほか：十二指腸腫瘍の臨床的考察。日消病会誌 58 : 1349-1350, 1961
 - 9) 河島秀昭, 和泉明宏, 高橋康幸ほか：十二指腸ブ
ルンネル腺過誤腫の一例。北海道外科誌 33 : 243-246, 1988
 - 10) 水落勝明, 大橋 賢, 加藤まことほか：十二指腸にみられた良性腫瘍の3例について。消内視鏡の進歩 3 : 116-120, 1973
 - 11) **Kehl O, Buhler H, Stamm B et al**: Endoscopic removal of a large obstructing and bleeding duodenal Brunner's gland adenoma. Endoscopy 17 : 231-232, 1985
 - 12) 柴 忠明, 野崎達夫, 橋村千秋ほか：十二指腸乳頭部早期癌の1手術例。日外科系連会誌 21 : 96-100, 1995
 - 13) 田坂健二：十二指腸乳頭部癌の病理組織学的研究。福岡医誌 68 : 20-44, 1977
 - 14) 中村卓次, 飯塚 啓, 岡田了三ほか：十二指腸の腫瘍 1 悪性腫瘍；胃癌との重複。胃と腸 4 : 223-229, 1969
 - 15) **Oh C, Jemerin EE**: Benign adenomatous polyps of the papilla of vater. Surgery 57 : 495-503, 1965