

●画像診断

臍性胸水を伴う縦隔内臍仮性嚢胞の2例

伊藤 隼 川口祐貴子 伊藤 貴康
高木 達矢 福島 曜 松本 政実

要旨：症例1は40歳代，男性，症例2は60歳代，男性。ともに主訴は呼吸困難でアルコール性慢性臍炎の既往があり，胸水貯留と食道裂孔を介して縦隔に進展した臍仮性嚢胞を認めた。胸水は黒色血性で胸水中 amylase は著増しており，臍仮性嚢胞の胸腔内穿破と考えられた。症例1では胸腔ドレナージ・臍炎治療では改善なく，内視鏡的経乳頭的ドレナージ，ソマトスタチン誘導体も併用した。症例2では胸腔ドレナージと臍炎治療が行われた。2例とも改善を認め，本疾患の治療の主体は臍液ドレナージと臍液産生の抑制であると考えられた。縦隔内臍仮性嚢胞による臍性胸水の報告は散見されるが，実際に遭遇することはまれであり，胸水貯留，特に黒色胸水の鑑別として本疾患があることに留意されたい。

キーワード：縦隔内臍仮性嚢胞，臍性胸水，内視鏡的経乳頭的ドレナージ

Mediastinal pancreatic pseudocyst, Pancreatic pleural effusion,
Endoscopic transpapillary drainage

緒言

臍仮性嚢胞は高頻度に経験するが，嚢胞が縦隔内に進展し臍性胸水を伴う例がある。そのような症例は保存的治療に抵抗性であることが多く，以前は外科的ドレナージを施行することが多かったが，内視鏡的治療やソマトスタチン誘導体が有効であるとの報告がみられるようになってきている。今回我々は，2症例を経験し治療したので報告する。

症例

【症例1】

患者：40歳代，男性。

主訴：呼吸困難。

既往歴：アルコール性慢性臍炎。

家族歴：特記事項なし。

生活歴：瓶ビール5本/日×20年，喫煙20本/日×24年。

現病歴：2009年2月より慢性臍炎の急性増悪で2度の救急外来受診あり。禁酒指示を守れず，定期受診も拒否していた。2010年4月16日午後には咳嗽と呼吸困難が

出現し，翌日4月17日に一宮市立市民病院救急外来を受診，胸水貯留，呼吸不全を認め同日入院となった。腹部症状は認められなかった。

入院時現症：身長168cm，体重50.6kg，意識清明，体温37.9℃，血圧96/55mmHg，脈拍126/min・整，SpO₂91%（室内気），右側呼吸音は減弱していた。腹部に圧痛は認めなかった。

臨床検査成績（Table 1）：炎症反応上昇を認め，臍酵素の上昇を認めた。胸部X線写真では右肺に著明な胸水貯留がみられた（Fig. 1A）。

臨床経過：右胸腔にドレインを留置し排液した。性状は黒色血性の滲出性胸水で，培養は陰性，細胞診にも悪性所見は認めなかった。悪性胸水や結核性胸膜炎，膠原病などが鑑別に挙げられたが，造影CTを施行すると著明な右胸水認め，左胸水を少量認めるとともに，臍尾部に分枝臍管の嚢状拡張を示唆する嚢胞性病変が食道裂孔を介して後縦隔に連続していた。縦隔内で二手に分かれ一方は左胸腔に，他方は右胸腔に連続しており，嚢胞の最上部は大動脈弓にまで達する像が観察された（Fig. 1B, C）。臍性胸水が鑑別として挙がり，胸水中 amylase を測定すると13,440 IU/Lと著増していた。臍性胸水を伴う縦隔内臍仮性嚢胞と慢性臍炎急性増悪として，胸腔ドレナージと臍炎治療すなわち絶食を実施し，メシル酸ガベキサート（gabexate mesilate），シチコリン（citicoline），スルバクタム/セフォペラゾン（sulbactam/cefoperazone）2g/日を投与した。

連絡先：松本 政実

〒491-8558 愛知県一宮市文京2-2-22

一宮市立市民病院

(E-mail: mason@energy.ocn.ne.jp)

(Received 12 Dec 2012/Accepted 18 Mar 2013)

Table 1 Laboratory findings (Patient 1)

Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	14,400/ μ l	TP	6.0 g/dl	CRP	19.04 mg/dl
Neutro	77%	Alb	2.7 g/dl	CEA	1.2 ng/ml
Eosino	3%	AST	14 IU/L	CA19-9	17.7 U/ml
Lymp	12%	ALT	5 IU/L	Pleural effusion	
Mono	7%	ALP	341 IU/L	Black in color, exudative, bloody	
Baso	0%	γ -GTP	20 IU/L	Total cell count	1,100/ μ l
RBC	396×10^3 / μ l	LDH	310 IU/L	Seg	32%
Hb	11.5 g/dl	AMY	360 IU/L	Eosino	5%
Plt	77.5×10^3 / μ l	T-Bil	0.6 mg/dl	Lymp	4%
Blood gas analysis (room air)		Ca	7.8 mg/dl	Mono	59%
pH	7.486	BUN	16.0 mg/dl	LDH	1,253 IU/L
PCO ₂	30.8 Torr	Cre	0.55 mg/dl	TP	3.9 g/dl
PO ₂	53.9 Torr	Lipase	1,045 U/ml	Glu	69 mg/dl
HCO ₃ ⁻	22.7 mEq/L	Elastase-1	1,600 ng/ml	ADA	32.0 IU/L
BE	0.1 mmol/L			AMY	13,440 IU/L
				Culture	negative
				Cytology	negative

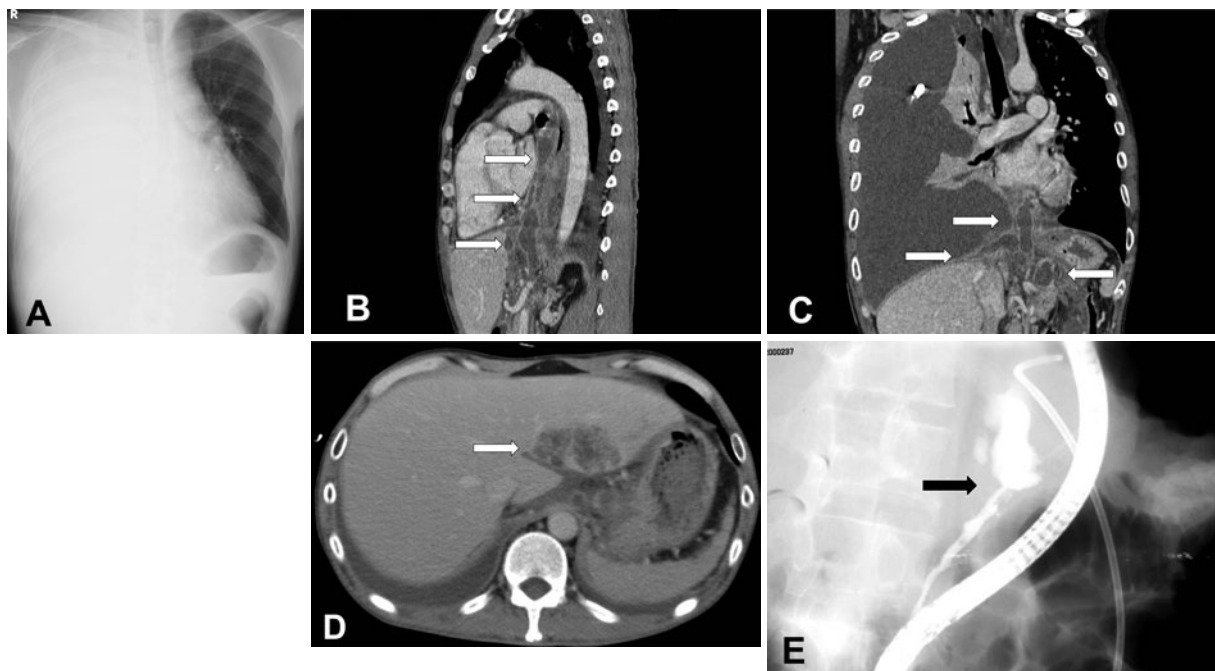


Fig. 1 (A) Chest radiograph on admission showed a massive right pleural effusion. (B, C) Computed tomography (CT) scans showing that pancreatic pseudocysts were extending to the posterior mediastinum via the esophageal hiatus. (D) The pseudocyst intruded into the left lobe of the liver. (E) Endoscopic retrograde pancreatography showed the communication between the main pancreatic duct and cystic lesion at the pancreatic tail.

2週間経過し胸水は減少したものの血清 amylase の改善は得られず仮性嚢胞の肝左葉への波及も示唆されたため (Fig. 1D), 経皮的に穿刺排液した。穿刺液の性状は胸水と同様の黒色血性で amylase は 88,000 IU/L と高値を示し、細菌培養陰性であったことから膵仮性嚢胞の肝

内穿破と診断、経皮経肝膵液ドレナージを施行するとともにソマトスタチン誘導体であるオクトレオチド (octreotide) 600 μ g/day を投与した。内視鏡的膵管造影 (endoscopic retrograde pancreatography : ERP) (Fig. 1E) を行うと主膵管と仮性嚢胞との連続性が認められ、

Table 2 Laboratory findings (Patient 2)

Hematology		Biochemistry		Serology	
WBC	6,700/ μ l	TP	8.1 g/dl	CRP	4.94 mg/dl
Neutro	62%	Alb	3.3 g/dl	CEA	1.8 ng/ml
Eosino	4%	AST	27 IU/L	CA19-9	6.7 U/ml
Lymp	26%	ALT	39 IU/L		
Mono	7%	ALP	267 IU/L	Pleural effusion	
Baso	1%	γ -GTP	87 IU/L	Black in color, exudative, bloody	
RBC	467×10^3 / μ l	LDH	180 IU/L	Total cell count	1,100/ μ l
Hb	14.7 g/dl	AMY	485 IU/L	Seg	27%
Plt	30.8×10^3 / μ l	T-Bil	0.5 mg/dl	Eosino	7%
		Ca	8.5 mg/dl	Lymp	1%
Blood gas analysis (room air)		BUN	11.7 mg/dl	Mono	65%
pH	7.351	Cre	0.93 mg/dl	LDH	371 IU/L
PCO ₂	46.8 Torr	Lipase	486 U/ml	TP	5.0 g/dl
PO ₂	74.6 Torr	Elastase-1	1,200 ng/ml	Glu	122 mg/dl
HCO ₃ ⁻	25.3 mEq/L			ADA	37.3 IU/L
BE	0.7 mmol/L			AMY	16,655 IU/L
				Culture	negative
				Cytology	negative

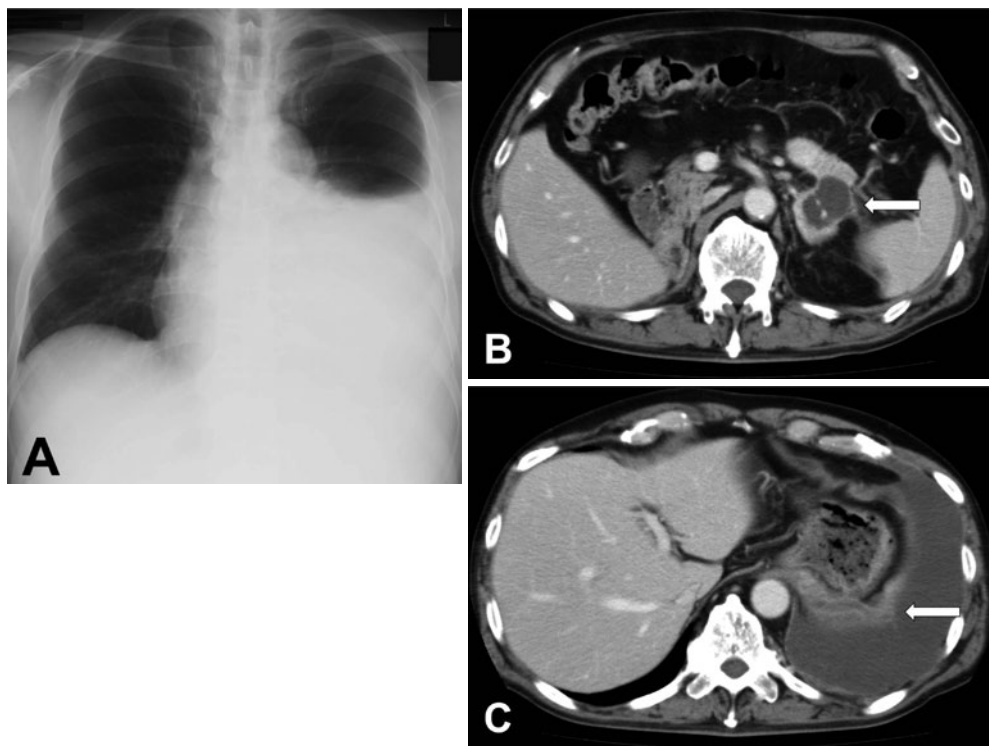


Fig. 2 (A) Chest radiograph showed a massive pleural effusion at left. (B) CT scans of the abdomen showed a pancreatic pseudocyst at the pancreatic tail. (C) CT scans also showed communication between a pancreatic pseudocyst at the pancreatic tail and mediastinal cystic lesions, and the cystic lesion intruded into the left thoracic cavity.

内視鏡的経乳頭的ドレナージも併用した。その後、排液量の減少がみられるとともに全身状態も改善し第53病日に退院となった。

【症例2】

患者：60歳代，男性。

主訴：呼吸困難。

既往歴：アルコール性慢性膵炎，右腎細胞癌（53歳）

で手術).

家族歴：特記事項なし。

生活歴：焼酎 2 合/日×40 年，喫煙 30 本/日×43 年。

現病歴：2007 年より数ヶ月に 1 回程度腹痛を自覚することがあったが自然軽快することにより放置していた。2010 年 3 月 25 日より呼吸困難と軽度の胸痛を自覚し，徐々に増悪したため同年 4 月 1 日に近医受診，左胸水を指摘され一宮市立市民病院へ紹介となった。咳嗽や腹部症状は認められなかった。

入院時現症：身長 164 cm，体重 55.0 kg，意識清明，体温 36.2°C，血圧 109/81 mmHg，脈拍 90/min・整，SpO₂ 98%（室内気），左側呼吸音は減弱していた。腹部に圧痛は認めなかった。

臨床検査成績（Table 2）：炎症反応の軽度上昇を認め，膵酵素の上昇がみられた。胸部 X 線写真では左側胸水を認めた（Fig. 2A）。

臨床経過：左胸腔にドレインを留置し排液した。性状は症例 1 と同様に黒色血性で胸水中 amylase は 16,655 IU/L と著増していた。造影 CT では膵尾部に由来する仮性嚢胞が食道裂孔を介して縦隔内に進入し，胸膜に沿って左胸腔内に連続していた（Fig. 2B, C）。膵性胸水と考えられ，胸腔ドレナージと，症例 1 と同様の膵炎治療を施行したところ胸水は速やかに消失し，仮性嚢胞も縮小した。第 12 病日に ERP を実施したが主膵管と嚢胞の連続性はみられず自然閉鎖していると考えられた。血液データや全身状態も改善し，第 29 病日に退院となった。

考 察

急性膵炎，慢性膵炎，膵外傷後の合併症として膵仮性嚢胞が知られているが，縦隔内進展し胸腔内に膵液が貯留する例はまれである^{1)~3)}。膵仮性嚢胞は線維や肉芽組織などで被包化された膵液貯留であり⁴⁾，急性膵炎で 16~50%，慢性膵炎の 20~40% に発生し，そのほとんどはアルコール性膵炎と関連している⁵⁾。縦隔内膵仮性嚢胞の形成機序は，膵管の破綻が膵液の膵外漏出を引き起こし，後腹膜腔から抵抗減弱部である食道裂孔，大動脈裂孔を介して縦隔内に進展するためとされている⁶⁾。縦隔内膵仮性嚢胞の報告は少なく，我々が医学中央雑誌で検索しえた範囲では 45 例であった。中年男性で，飲酒歴があり，膵炎を繰り返している病歴をもち，胸水を合併する点が多く例で共通している。本症例のように腹部所見を認めず，血清 amylase が正常もしくは軽度上昇に留まる症例もみられ診断に苦慮することもある³⁾⁶⁾。その要因は膵液が胸腔内にドレナージされ膵管内圧が小さくなるためと考えられる。他方，縦隔内膵仮性嚢胞が胸膜穿通を起こさず胸水がみられなかった症例は 10 例

(21%) であり，これらでは呼吸困難を認めないが，嚢胞内，膵管内とも減圧されないため，腹痛や背部痛など膵炎症状がみられる。このように胸水貯留をきたした症例では典型的な症状がなく，飲酒歴や外傷歴から本疾患を疑い胸水中 amylase 測定が行われるべきであり，本症例を経験した当院では胸水検査の項目に amylase が追加された。本疾患による胸水は黒色であり，これは膵液により胸膜が障害され出血，溶血するためと考えられている。黒色胸水は感染，悪性疾患でもみられるがまれであり，本疾患を疑う手がかりとなりうる。また，胸水中 amylase 高値は急性膵炎や悪性疾患，食道破裂でも起こりうるが 1,000 IU/L 未満であることがほとんどであり，本症例のように異常高値であれば本疾患の可能性が高い⁷⁾。過去の報告例をみると診断には CT を用いられることが多く，膵管との連続性を証明するために，ERP もしくは磁気共鳴胆管膵管造影（magnetic resonance cholangiopancreatography：MRCP）が施行されている。ERP は膵炎の悪化など致死の合併症があり，膵炎の鎮静化後に行うのがよいとされているが，症例 2 のようにすでに自然閉鎖していたり，また膵石により膵管造影が困難な例があり，そのような場合に非侵襲的な MRCP はその欠点を補い有用であるとする報告がみられる¹⁸⁾。膵仮性嚢胞の治療に関して meta-analysis およびランダム化比較試験の報告はない。縦隔内膵仮性嚢胞の治療については，胸水合併の有無，膵管との交通や嚢胞径により決定される⁵⁾。嚢胞内，膵管内の減圧を得ることが重要であり，膵液産生の抑制やドレナージが感染などの合併症を防ぎ嚢胞の縮小化につながる。胸水ドレナージと膵炎治療のみで改善する例もあるが，本症例 1 のように，膵外分泌機能を抑制するソマトスタチン誘導体であるオクトレオチドが奏効した症例も散見される³⁾⁹⁾¹⁰⁾。

膵管と嚢胞に交通がみられた場合は内視鏡的経乳頭のドレナージの併用も有効である^{11)~15)}。膵仮性嚢胞が肝穿破した症例はまれであるが，このような症例には経皮経肝ドレナージも有用であると考えられた。しかしながら，このような減圧治療が奏効しない症例，嚢胞内感染，嚢胞内出血，腹腔内破裂，消化管圧迫，消化管穿破など重篤な合併症をきたした場合は外科的切除を考慮すべきであり，保存的加療中も重症合併症に注意を払う必要がある。

本症例のような症例はまれではあるが，胸水関連の症状を主訴に来院する例も多く，胸水の鑑別診断として縦隔内膵仮性嚢胞も考慮するべきと思われた。

著者の COI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- 1) 徳永隆成, 塩崎 剛. 膵性胸水を伴った縦隔内膵仮性嚢胞の1例. 日呼吸会誌 2007; 45: 95-9.
- 2) 明石哲郎, 河辺 顕, 坂本竜一, 他. ソマトスタチン誘導体が奏効し, 保存的に治療し得た縦隔内膵仮性嚢胞の1例. 日消誌 2003; 100: 713-8.
- 3) 松本章子, 水田陽平, 増田淳一, 他. 繰り返し発症した縦隔内膵仮性嚢胞の1例. 日消誌 2006; 103: 432-7.
- 4) Habashi S, Draganov PV. Pancreatic pseudocyst. *World J Gastroenterol* 2009; 15: 38-47.
- 5) Grace PA, Williamson RCN. Modern management of pancreatic pseudocysts. *Br J Surg* 1993; 80: 573-81.
- 6) Cameron JL. Chronic pancreatitis ascites and pancreatic pleural effusions. *Gastroenterology* 1978; 74: 134-40.
- 7) Koide T, Saraya T, Nakajima A et al. A 54-year-old man with an uncommon cause of left pleural effusion. *Chest* 2012; 141: 560-3.
- 8) 田中恒夫, 真次康弘, 中原英樹, 他. 膵性胸水をともないMRIにて内瘻が描出できた縦隔内膵仮性嚢胞の1例. 日消誌 2008; 105: 81-5.
- 9) Suga H, Tsuruta O, Okabe Y, et al. A case of mediastinal pancreatic pseudocyst successfully treated with somatostatin analogue. *Kurume Med J* 2005; 52: 161-4.
- 10) 石橋一伸, 鈴木貴弘, 磯尾泰之, 他. ソマトスタチン誘導体が奏効した縦隔内膵仮性嚢胞の1例. 日消誌 1998; 96: 176-80.
- 11) Mallavarapu R, Habib TH, Elton E, et al. Resolution of mediastinal pancreatic pseudocysts with transpapillary stent placement. *Gastrointest Endosc* 2001; 16: 1506-9.
- 12) Kim DJ, Chung HW, Gham CW, et al. A case of complete resolution of mediastinal pseudocyst and pleural effusion by endoscopic stenting of pancreatic duct. *Yonsei Med J* 2003; 30: 727-31.
- 13) Musana KA, Yale SH, Abdulkarim A, et al. Successful endoscopic treatment of mediastinal pseudocyst. *Clin Med Res* 2004; 2: 119-23.
- 14) 青山育雄, 石田悦嗣, 松枝和宏, 他. 内視鏡的乳頭的ドレナージが有効であった縦隔内膵仮性嚢胞の2例. *Gastroenterol Endosc* 2008; 50: 2859-65.
- 15) Bhasin DK, Rana SS, Nanda M, et al. Endoscopic management of pancreatic pseudocysts at atypical locations. *Surg Endosc* 2010; 24: 1085-91.

Abstract

Two cases of mediastinal pancreatic pseudocyst accompanied by pancreatic pleural effusion

Shun Ito, Yukiko Kawaguchi, Takayasu Ito, Tatsuya Takaki,
Akira Fukushima and Masami Matsumoto
Department of Pulmonary Medicine, Ichinomiya Municipal Hospital

We report two patients with pancreatic pleural effusion who presented with dyspnea. Patient 1 was a male in his 40s and patient 2 was a male in his 60s. Both have the same past history of chronic alcohol-related pancreatitis. The chest X-ray and CT images showed massive pleural effusion and a pancreatic pseudocyst extending to the posterior mediastinum through the esophageal hiatus. The thoracentesis fluid was bloody, black in color, and sterile. Amylase in pleural fluid was elevated to a high level. From these examinations, in both cases a diagnosis of chronic alcohol-related pancreatitis accompanied by mediastinal pancreatic pseudocyst and pancreatic pleural effusion was made. Patient 1 was treated by thoracic cavity drainage, endoscopic nasopancreatic drainage, and somatostatin analogue. Patient 2 underwent only thoracic cavity drainage. In both cases, the pleural fluid with a high amylase level disappeared, and pancreatic pseudocyst was reduced with such treatments. Pancreatic pseudocyst was considered as one of the differential diagnoses of pleural effusion, especially with black pleural fluid.