

## ●症 例

## 黒色胸水で発見された膵胸腔瘻の1例

杉谷 新 武田 倫子 川本 珠貴

要旨：症例は46歳，男性．アルコール性急性膵炎の既往があり，左背部痛と呼吸困難を主訴に受診した．CTで左大量胸水と膵体部背側の仮性嚢胞を認め，胸腔ドレナージを開始した．胸水は黒色であり，胸水中アミラーゼは19,558 U/Lと異常高値であった．以上の所見から膵胸腔瘻と診断し，保存的治療を行ったが改善に乏しく，内視鏡的膵管ステントの留置にて軽快した．膵胸腔瘻は臨床上稀であり，胸腔ドレナージなどの保存的治療に抵抗する場合は，内視鏡的または外科的治療を検討する必要がある．

キーワード：膵仮性嚢胞，膵性胸水，膵胸腔瘻

Pancreatic pseudocyst, Pancreatic pleural effusion, Pancreaticopleural fistula

## 緒 言

黒色胸水は臨床上稀であり，鑑別としては真菌感染，悪性黒色腫，膵性胸水などがある．今回我々はアルコール性急性膵炎の治療後，膵仮性嚢胞の胸腔内進展による膵胸腔瘻を経験したので報告する．

## 症 例

患者：46歳，男性．

主訴：左背部痛，呼吸困難．

生活歴：喫煙；1日15本を26年，飲酒；缶ビール1日2本（自己申告）．

既往歴：アルコール性急性膵炎，肺炎，右鎖骨骨折．

現病歴：2020年5月初旬より左背部痛が出現し，呼吸困難を伴うため近医受診．胸部単純X線検査にて多量の左胸水貯留を認め，5月中旬に当院紹介受診となり，精査加療目的に入院となった．

入院時現症：身長164cm，体重58kg，意識清明．血圧113/66mmHg，脈拍97回/分・整，体温37.3℃，呼吸数12回/分，SpO<sub>2</sub> 92%（room air）．眼瞼結膜に貧血認めず，眼球結膜に黄疸認めず，心音は整，左側呼吸音は減弱し左側胸部に圧痛を認めた．腹部は平坦・軟で圧痛なく，四肢体幹に皮疹は認めず，表在リンパ節も触知しなかった．

入院時検査所見（Table 1）：アミラーゼ394U/L，リパーゼ134U/Lと膵酵素の上昇を認めた．

入院後経過：胸部単純X線写真（Fig. 1A）で左大量胸水を認め，胸部CT（Fig. 1B）では左大量胸水は縦隔を圧排しており，右胸腔内にも少量の胸水を認めた．左胸腔内に胸腔ドレナージチューブを留置し，黒色様の胸水を確認して排液した．胸水は滲出性で，好中球優位であり，一般的な血性胸水より黒色に近く，写真（Fig. 1C）に示すように醤油のような色合いの胸水であった．胸水中アミラーゼ19,558 U/Lと異常高値を示し，LDH 853 U/Lと上昇を認めた．胸水中の一般細菌・抗酸菌・真菌検査は陰性で，細胞診も悪性細胞を認めなかったが，アポトーシス細胞を認めた．入院時腹部CTの冠状断（Fig. 1D）では，慢性膵炎による仮性嚢胞を疑う低濃度域と両側胸腔内の連続性を疑う所見を認めた．ドレナージ後に磁気共鳴胆管膵管造影（magnetic resonance cholangiopancreatography：MRCP）を施行したが，胸腔内と仮性嚢胞の交通を示唆する明らかな所見は認めなかった．

以上より，膵仮性嚢胞の胸腔内進展による膵胸腔瘻と診断し，胸腔ドレナージは継続したまま，絶食，ウルナスタチン（ulinastatin）5万単位/日，スルバクタム・セフォペラゾン（sulbactam/cefoperazone：SBT/CPZ）2g/日の点滴静注を開始した．胸腔ドレナージは再膨張性肺水腫の合併を懸念し，毎日1,000 mLでクランプしたため，連日1,000 mL/日を排液し，色調の変化は認めなかった．また呼吸困難の訴えは少なかったものの，左胸痛を常時訴え，鎮痛剤の反応も乏しかったため，第7病日に手術適応などの評価を目的に他院転院となった．転院後は，第14病日に内視鏡的逆行性胆道膵管造影（endoscopic retrograde cholangiopancreatography：ERCP）にて膵

連絡先：杉谷 新

〒546-0014 大阪府大阪市東住吉区鷹合3-2-66

東住吉森本病院呼吸器内科

(E-mail: arata.sugitani@gmail.com)

(Received 27 Aug 2021/Accepted 10 Dec 2021)

Table 1 Laboratory data on admission

Hematology		Serology	
WBC	5,980/ $\mu$ L	CRP	1.2 mg/dL
Neu	62.1 %	CEA	<1.7 ng/mL
Eos	7.5 %	CYFRA	<1.0 ng/mL
Mon	9 %	ProGRP	32.4 pg/mL
Lym	20.6 %	CA19-9	26 U/mL
RBC	$400 \times 10^4$ / $\mu$ L	SPan-1	9.3 U/mL
Hb	13.4 g/dL	DU-PAN-2	37 U/mL
Plt	$25.4 \times 10^4$ / $\mu$ L	$\beta$ -D-glucan	17.2 pg/mL
		T-SPOT. TB	negative
Biochemistry		Pleural fluid	
TP	6.7 g/dL	Total cell count	125/ $\mu$ L
AST	40 U/L	Poly	56 %
ALT	25 U/L	Mono	44 %
LDH	212 U/L	Glu	69 mg/dL
BUN	4.3 mg/dL	LDH	853 U/L
Cre	0.66 mg/dL	TP	3.96 g/dL
Na	141 mmol/L	ADA	54.8 U/L
K	3.3 mmol/L	Hyaluronic acid	12,000 ng/mL
Ca	8.5 mg/dL	T-bil	8.6 mg/dL
Glu	95 mg/dL	D-bil	0.2 mg/dL
Amy	394 U/L	Amy	19,558 U/L
Lipase	134 U/L		
Arterial blood gas analysis (room air)		Culture	negative
pH	7.43	Cytology	negative
PaCO <sub>2</sub>	37.5 Torr		
PaO <sub>2</sub>	71.1 Torr		
HCO <sub>3</sub> <sup>-</sup>	24.2 mmol/L		
BE	0.1 mmol/L		
AaDO <sub>2</sub>	34.6 Torr		

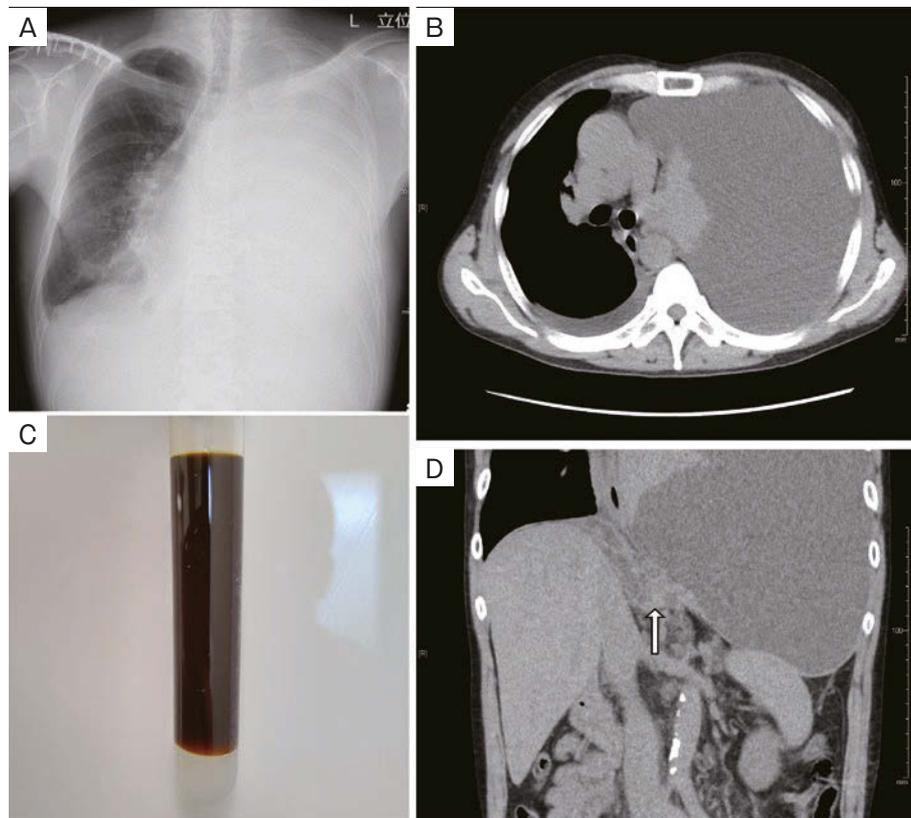
尾部に膵液瘻を確認し、内視鏡的経鼻膵管ドレナージ (endoscopic nasopancreatic drainage : ENPD) を行った。その後、一時胸水減少傾向を認めたが、ドレナージ不良が続き、第24病日に内視鏡的膵管ステント留置術を行い、内瘻化された。それでも胸水量の改善に乏しく、第31病日に再び内視鏡的膵管ステント留置術をさらに膵尾側に対して施行したところ、胸水排液は徐々に減少し、第43病日に胸腔ドレーン抜去、第50病日に退院となった。その後は、転院先外来にてフォローを継続し、適宜ステント交換を行い、再発なく経過している。

## 考 察

膵液が直接胸腔内に漏出し多量の胸水が貯留する状態を膵性胸水と呼ぶ<sup>1)</sup>が、膵性胸水が生じる過程で形成された胸腔内への瘻孔は膵胸腔瘻と定義されている<sup>2)</sup>。膵性胸水の原因として、慢性膵炎による膵仮性嚢胞穿破、慢性膵炎による膵管破綻、外傷性などがあり、急性膵炎でみられる反応性の胸水は含まず、本症例では縦隔内に進展した膵仮性嚢胞が穿破したものと考えられた。膵仮

性嚢胞はアルコール性膵炎との関連性が高く、急性膵炎で16~50%、慢性膵炎で20~40%に発生し<sup>3)</sup>、肉芽組織などで膵液が被包化されることで形成される。本症例では、本人の自己申告による飲酒量は過少報告であり、家族からの聴取ではかなりの大酒家であったようである。膵仮性嚢胞が縦隔内に進展し、胸腔内に膵液が貯留して膵性胸水に至る例は、膵仮性嚢胞を持つ患者の4.5%と比較的稀である<sup>4)</sup>。膵性胸水では膵胸腔瘻により仮性嚢胞が減圧されるため腹部症状に乏しく、呼吸困難や胸背部痛など胸部症状を訴える症例が多い<sup>5)</sup>。また胸水貯留側は左側に多く、右側は約20%、両側は約15%とされている<sup>6)</sup>。左側に多いのは膵性胸水の形成機序が関与しているものと考えられ、その機序は膵管の破綻により膵液が後腹膜腔から食道裂孔や大動脈裂孔など、抵抗減弱部を介して縦隔内や胸腔内に進展するものと考えられている<sup>2)</sup>。

膵性胸水による胸水は黒色である場合が多く、黒色胸水の鑑別疾患としては膵性胸水の他、真菌感染 (*Aspergillus niger*, *Rhizopus oryzae*)、悪性黒色腫などが挙げられるが、いずれも稀である<sup>7)</sup>。膵性胸水による胸水が黒色であ



**Fig. 1** Imaging findings. (A) Chest radiograph on admission showed massive left pleural effusion. (B) Computed tomography (CT) scans of the chest showed massive left pleural effusion and a small amount of right pleural effusion. (C) Black pleural effusion. (D) Abdominal CT scans showed the tubular structure from the thoracic cavity to the cystic lesion in the pancreatic body (arrow).

るのは、膵液により胸膜が障害され出血や溶血するためと考えられており、この特徴的な色調は本症例でも膵性胸水を疑う根拠となった。

また、胸水中のアミラーゼは急性膵炎、悪性疾患、食道破裂などで上昇しうるが、1,000 U/L未満であることがほとんどであり、異常高値であれば本疾患を疑う根拠となる<sup>7)</sup>。また胸水アルブミン値や胸水蛋白質などの高値も膵性胸水の所見として有用である<sup>8)</sup>。

画像所見としては、CTで膵内や膵周囲の嚢胞との連続性から診断されることもある<sup>9)</sup>が、膵管との交通を確認できない例もあり、膵管との連続性を証明するべく、内視鏡的逆行性胆道膵管造影 (ERCP) が行われるが、膵炎の悪化など致命的合併症があるため、仮性嚢胞形成後6週間以上経過し、膵炎がおさまってから検査が推奨されている<sup>10)</sup>。

膵胸腔瘻による膵性胸水の治療としては、嚢胞内や膵管内の減圧が重要であり、内視鏡的膵管ドレナージなどの保存的治療が第一選択となる。また膵液産生抑制の観点から、薬物療法として、膵外分泌機能を抑制するソマトスタチン誘導体による治療有効性も報告されている<sup>11)</sup>。

しかし、膵胸腔瘻が開存しているかぎり保存的加療では膵性胸水が再貯留する可能性があり、縦隔内膵仮性嚢胞に対する保存的治療のみでの死亡例も報告されている<sup>10)</sup>。そのため、3週間以上保存的治療に抵抗する症例は外科的治療を推奨する報告もある<sup>12)</sup>が、最近では経皮的嚢胞ドレナージが奏効した報告<sup>13)</sup>もある。外科的治療としては、膵管空腸吻合術などの内瘻術が主に行われており、瘻孔部を含む膵切除術も行う症例が10~30%存在する<sup>14)</sup>。本症例では外科的治療まで至らず、内視鏡的膵管ステントの留置にて軽快した。

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

### 引用文献

- 1) Uchiyama T, et al. Pancreatic ascites—a collected review of 37 cases in Japan. *Hepatogastroenterology* 1989; 36: 244-8.
- 2) Cameron JL. Chronic pancreatic ascites and pancreatic pleural effusions. *Gastroenterology* 1978; 74:

- 134-40.
- 3) Grace PA, et al. Modern management of pancreatic pseudocysts. *Br J Surg* 1993; 80: 573-81.
  - 4) Rockey DC, et al. Pancreaticopleural fistula. Report of 7 patients and review of the literature. *Medicine (Baltimore)* 1990; 69: 332-44.
  - 5) Uchiyama T, et al. Pancreatic pleural effusion: case report and review of 113 cases in Japan. *Am J Gastroenterol* 1992; 87: 387-91.
  - 6) Anderson WJ, et al. Chronic pancreatic pleural effusions. *Surg Gynecol Obstet* 1973; 137: 827-30.
  - 7) Koide T, et al. A 54-year-old man with an uncommon cause of left pleural effusion. *Chest* 2012; 141: 560-3.
  - 8) Cameron JL, et al. Internal pancreatic fistulas: pancreatic ascites and pleural effusions. *Ann Surg* 1976; 184: 587-93.
  - 9) Zeilender S, et al. Mediastinal pseudocyst associated with chronic pleural effusions. *Chest* 1990; 97: 1014-6.
  - 10) Johnston RH Jr, et al. Pancreatic pseudocyst of the mediastinum. *Ann Thorac Surg* 1986; 41: 210-2.
  - 11) Gullo L, et al. Treatment of pancreatic pseudocysts with octreotide. *Lancet* 1991; 338: 540-1.
  - 12) Kochhar R, et al. Pancreatic ascites and pleural effusion treated by endoscopic pancreatic stent placement. *Indian J Gastroenterol* 1995; 14: 106-7.
  - 13) Takeuchi Y, et al. CT-guided drainage of a mediastinal pancreatic pseudocyst with a transhepatic transdiaphragmatic approach. *Hepatogastroenterology* 2002; 49: 271-2.
  - 14) Dhar P, et al. Internal pancreatic fistulae with serous effusions in chronic pancreatitis. *Aust N Z J Surg* 1996; 66: 608-11.

#### Abstract

### A case of pancreaticopleural fistula detected due to black pleural effusion

Arata Sugitani, Noriko Takeda and Tamaki Kawamoto

Department of Pulmonary Medicine, Higashisumiyoshi Morimoto Hospital

A 46-year-old man was admitted with dyspnea and back pain. He had a past history of chronic alcohol-related acute pancreatitis. Whole-body computed tomography scan revealed massive left black pleural effusion and a tubular structure from the thoracic cavity to the cystic lesion on the dorsal side of the pancreatic body. The pleural fluid revealed high amylase levels and no malignant cells. From these examinations, he was diagnosed with pancreaticopleural fistula with pancreatic pleural effusion and pancreatic pseudocyst associated with chronic alcohol-related pancreatitis. Chest tube drainage and endoscopic pancreatic drainage were performed, and thereafter he was discharged uneventfully.