

非寄生虫性肝嚢腫の検討

金沢大学第2外科教室

木南 義男 大野 進 河村 允
土原 一弘 古川 信 小坂 進

STUDIES ON NON-PARASITIC CYSTS OF THE LIVER

Yoshio KINAMI, Susumu ONO, Makoto KAWAMURA, Kazuhiro TUTIHARA,

Makoto FURUKAWA and Susumu KOZAKA

Second Department of Surgery, Kanazawa University, School of Medicine

肝嚢腫は比較的稀な疾患であるが、時に外科領域においても経験されるところである。教室における過去14年間の症例を検索したところ、非寄生虫性孤立性肝嚢腫6例および多発性肝嚢腫5例が治験されている。これらの診断と手術成績について検討した。術前診断が肝嚢腫とされたものは3例に過ぎず悪性腫瘍との鑑別が困難であり、また合併症を伴う症例が可成りあることが注目された。手術成績では孤立性肝嚢腫に対しとくに嚢腫全別を目的とした肝切除術が実施されているが2例失つており、本症が良性疾患である点に注意をはらう必要性を認めた。術後経過は良好であり最長14年になるが、全症例の10年以上経過例は5例であつた。

I. 緒 言

良性肝腫瘍として取扱われる症例のうち、肝嚢腫も外科的治療の対象となりうるものである。Henson¹⁾²⁾³⁾は良性肝腫瘍の分類を行い嚢腫を先天性、後天性および腫瘍性嚢腫に分け、さらに先天性のものを孤立性と多発性に區別している。1846年 Brodie が非寄生虫性孤立性肝嚢腫⁷⁾¹⁴⁾を、1856年 Bristowe が多発性肝嚢腫¹⁾¹⁹⁾を報告して以来、比較的まれな疾患とされながら多くの症例が記載され、最近では診断法の進歩に伴い報告例が増加しているようである。

先天性肝嚢腫は良性であり経過は長い、孤立性および多発性とも大きな嚢腫は肝臓のみならず周囲臓器を圧迫し障害をもたらす。一方、本症は時に合併症を伴うし、また Richmond⁹⁾ が報告した如く嚢腫壁の悪性化の可能性も否定できない。したがって外科的適応は慎重でなければならぬが、今後とも診断法とともに手術方法の検討が望まれるところである。私どもは昭和35年より48年までの14年間教室で取扱つた孤立性肝嚢腫6例および多発性肝嚢腫5例を報告し、今後の診断および治療法の問題点を検討した。

II. 成 績

1) 症例：教室で14年間に経験した症例は孤立性嚢腫

6例と多発性嚢腫5例の11例である(表1)。当科入院時の年齢は2才2カ月から65才におよぶが、孤立性多発性あわせて50才台5例、60才台3例および40才台以下の3例であつた。性別では孤立性嚢腫例は女性5例に対し男性1例であるが、多発性嚢腫例では女性1例に対し男性4例である。一方、初発症状出現から来院までの期間についてみると、最短4日から最長9年におよぶが、比較的短期間の症例は他の合併疾患の発症により本症が発見されている。

2) 症状：多発性嚢腫例の胃癌で来院した症例の症状は本症によるものでなく胃癌によるものである。しかし他の症例は合併症を伴っているものもあるが、いずれも本症の症状が主体であつた。孤立性嚢腫例では他覚的に肝腫大または肝腫瘤が全例に認められ、自覚的には腹部不定愁訴3例、上腹部疼痛2例、体重減少2例および発熱と全身倦怠感がそれぞれ1例に認められている。一方、多発性嚢腫例では5例中4例に肝腫大または腫瘤が認められ、上腹部疼痛を訴えたもの3例、発熱と全身倦怠感がそれぞれ2例および腹部不定愁訴、体重減少、黄疸がみられたもののおおの1例づつであつた(表2)。腹部不定愁訴は圧迫感や膨満感が主体をなすが、上腹部疼痛の性状は教室例では軽度で体動時にいくらか増強をみ

表1 14年間における非寄生虫性肝囊腫症例

症例	年齢	性別	部位	大きさ (cm)	剖面	合併臓器	合併症	手術
1) M.S.	55才	♀	左葉	7×7×5	単房	—	胆嚢結石	左外側区域切除 胆嚢剔除
2) A.S.	40才	♀	左葉	11×10×7	単房	—	—	左葉切除
3) K.K.	34才	♀	左葉	10×10×3	単房	—	肝硬変症	嚢腫全剝奪葉部分切除
4) K.K.	59才	♀	右葉	成人頭大	多房	—	—	右葉切除
5) A.S.	2才2ヶ月	♂	右葉	20.5×16.5×18.0	多房	—	一部血管腫合併	拡大右葉切除
6) M.S.	52才	♀	左葉	10.5×10.0×8.0	単房	—	—	嚢腫剔出
1) M.N.	59才	♀	両葉	小豆大→鶏卵大	単房	—	亜急性肝炎	一部切開 試験開腹
2) A.T.	64才	♂	両葉	拇指頭大→鶏卵大	不明	—	—	他院で胃部分切除
3) K.S.	63才	♂	両葉	小豆大→示指頭大	単房	腎	胃癌 stage IV	胃空腸吻合
4) I.Y.	55才	♂	両葉	小豆大→鳩卵大	単房	腎	胆嚢内出血	一部切開 胆嚢剔除
5) M.K.	65才	♂	両葉	小豆大→14×15×13	多房	—	慢性肝炎	拡大右葉切除

表2 教室例における自覚および他覚症状の発現状態

自覚症状	孤立性 6例	多発性 5例
1) 腹部不定愁訴	3	1
2) 疼痛	2	3
3) 発熱	1	2
4) 体重減少	2	1
5) 黄疸	0	1
6) 全身倦怠感	1	2
7) 合併疾患による症状	0	1
他覚症状 肝腫大または肝腫瘍	6	4

る。また大きな嚢腫例では体重減少を伴っていることが注目される。多発性嚢腫例で黄疸をみた例があるが、その程度は一過性で軽く亜急性肝炎の合併によるものであった。全症例を総括すれば軽度の上腹部愁訴と経過の長

い肝腫大または肝腫瘍が本症の症状の主体をなしているといえる。

3) 臨床検査所見：血液所見では全体的にみて軽度ではあるが貧血傾向にある。血清蛋白は全症例の過半数に低下をみたが、黄疸指数は最高値が9でほとんど正常値であった。BSP30分値の異常例は検索7例中3例に認められるも、その他の肝機能所見には明らかな異常値はみられなかつた(表3)。比較的長期間にわたる臨床検査所見の追跡例は多発性嚢腫例に1例あり、初回入院時赤血球数396万であったが5年後再入院時258万と可成りの減少をみ、血清蛋白は6.0から5.1と低下した。しかし肝機能検査では明らかな変化は認めなかつた。つぎに合併症として肝炎、肝硬変あるいは胆嚢結石を伴う症例があるが、術前肝機能所見において明らかにこれらの合併症を診断するような所見はみられなかつた。

4) 診断：術前診断にて肝嚢腫と診断された症例は孤

表3 本症の入院時臨床検査所見

症例	年齢	性別	赤血球数	白血球数	Hb%	血清蛋白	黄疸指数	BSP(30)	AL-P	S-GOT	S-GPT	ZTT	TTT
1. M.S.	55才	♀	402×10 ⁴	5800	81	7.8	7	9%					
2. A.S.	40才	♀	380×10 ⁴	4200	82	6.4	5	4.5%	1.4			8.0	1.5
3. K.K.	34才	♀	375×10 ⁴	5700	68	6.4	5	4.0%	1.7			14.6	3.8
4. K.K.	59才	♀	327×10 ⁴	4200	62	6.6	5	5.5%	3.5	23	10	9.2	2.3
5. A.S.	2才2ヶ月	♂	400×10 ⁴	13800	60	7.6			4.9	36	17		
6. M.S.	52才	♀	445×10 ⁴	5300	90	7.6	6		3.3	28	23	5.0	2.4
1. M.N.	59才	♀	371×10 ⁴	7900	78	7.0	8	30%	1.5	24	18	13.4	4.3
2. A.T.	64才	♂	396→258×10 ⁴	5600→5200	81→82	6.0→5.1	5→4	5.5→?	1.6→2.0	13→21	8→8	?→9.8	?→2.0
3. K.S.	63才	♂	365×10 ⁴	3800	62	5.4	4		2.0	21	10	9.0	1.9
4. I.Y.	55才	♂	419×10 ⁴	8000	85	6.6	4		3.3	75	42	3.2	0.9
5. M.K.	65才	♂	434×10 ⁴	4600	80	6.6	9	14%	1.5	37	19	9.5	5.9

立性2例および多発性1例に過ぎなかつた。肝腫瘍、とくに悪性腫瘍と診断された症例は孤立性3例、多発性1例であるが、孤立性囊腫ではこの傾向が強く鑑別診断が重要である。小児例では囊腫が巨大なため腹部腫瘍とされているが、本症が比較的稀なことも診断に影響を与えている。多発性囊腫の2例が胆嚢疾患と診断されて開腹されたが、いずれも臨床所見と胆嚢造影所見がその根拠となっている(表4)。

表4 本症の術前診断の頻度

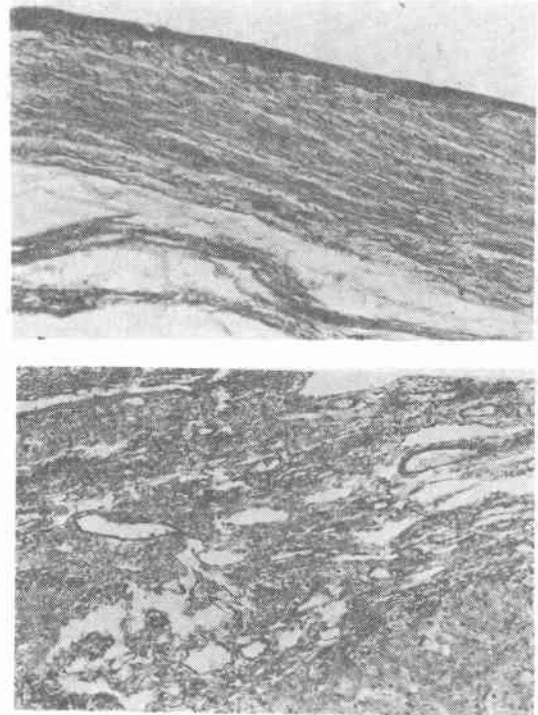
術前診断	孤立性	多発性
1) 肝囊腫	2	1
2) 肝腫瘍	3	1
3) 腹部腫瘍	1	0
4) 胆嚢疾患	0	2
5) 胃癌	0	1

全例に肝シンチグラム(^{198}Au)が行われており、孤立性囊腫は限局性欠損像が得られ、多発性囊腫は肝全体に小さな欠損像をみているが、質的診断は不能といわざるを得なかつた。一方、腹腔鏡検査および穿刺による診断例はない。また通常のX線検査からは囊腫による周囲臓器の圧迫所見が得られているに過ぎないとしても、それは他臓器における囊腫の合併を推定するのに有効であつた。現在のところ最も有益と考えられる検査法は肝血管造影法(特に動脈造影)であるが、教室例では2例に肝動脈造影が実施されている。肝内動脈枝の圧排伸展および肝毛細血管相における陰影欠損像が主な所見であつた。本法が実施されれば可成りの確診率が得られると推定されるが、合併症が主症状を示す際には実施されない場合もあり、胆嚢疾患と診断された多発性囊腫の1例が好例である。

5) 開腹および病理学的所見: 当科で開腹が実施された症例は10例であり、多発性囊腫の1例が他院にて胃潰瘍で胃切除を受けたが、その際に肝の両葉に囊腫があると確認されている。

孤立性囊腫例では右葉にあつたもの2例、および左葉にあつたもの4例である。大きさは最大のものが成人頭大でほとんど右葉全体が囊腫で占められており、小児例の $20.5 \times 16.5 \times 18.0\text{cm}$ の囊腫も同様の所見がみられた。これら囊腫の断面の状態は単房性が4例と多房性が2例である。いずれも先天性囊腫であるが胆管貯溜囊腫とみられるものが2例あり、そのうち1例の囊腫壁に石灰化が認められ、小児例の囊腫壁外側肝組織内に一部血管腫の合併がみられた(写真)。腎およびその他臓器には囊腫の合併はみられなかつたが、合併症として胆嚢結石1例

写真1 2才2カ月の孤立性肝囊腫例。上は囊腫壁、下は壁に接した肝組織内血管腫。



と肝硬変症1例があつた。

多発性囊腫例ではいずれも囊腫が両葉に散在して認められたが、大きさはさまざまで小豆大から最大 $14 \times 15 \times 13\text{cm}$ までみられた。他院開腹例は不明であるが、断面についてみると単房性3例と多房性1例であり、右葉に大きな主囊腫がある例では主囊腫は多房でそれに数個の小囊腫(最大径5cm)が附着していた。胆石様症状を示した症例では、胆嚢床部の囊腫が胆嚢内に穿破し胆嚢内出血を起こしていた(図)。腎臓囊腫の合併が2例にみられたが、合併症として亜急性および慢性肝炎の合併がそれぞれ1例ずつと胃癌(Stage IV)の合併が1例みられた。

6) 手術術式と予後: 孤立性囊腫例では全例に囊腫全別出を目的として手術が行われたが、囊腫別出術のみは1例、左葉切除1例、左外側区域切除と胆嚢別出1例、囊腫別出および左葉部分切除1例、囊腫切開を行い右葉切除したもの1例、拡大右葉切除1例であり、囊腫を含む肝切除術が主体をなしている。一方、多発性囊腫例では一部囊腫切開を行つた試験開腹1例、胃癌に対する胃腸吻合1例、一部切開と胆嚢別出1例および右葉の主囊腫に対する拡大右葉切除が行われた1例であるが、積極的治療となり得ないものがほとんどであつた。術後成績

図 胆嚢床部の嚢腫が胆嚢内に穿破して胆嚢内出血が認められた。術中ゲフリールによる組織診断では穿破部位に炎症所見が認められたが原因不明であった。



についてみると、孤立性嚢腫例で右葉切除を行つた1例が術後出血で術後2日目に死亡し、多発性嚢腫例で拡大右葉切除を行つた1例が肝不全のため術後14日目に死亡しているが、他の症例は経過良好であつた。

手術死を除いた9例の術後経過についてみると、孤立性嚢腫例では最長14年で10年以上経過例3例、5年および4年がそれぞれ1例であり発症より来院までの期間を含めると最長19年におよぶ症例もあるが、全例生存中である。多発性嚢腫例では手術死および胃癌での死亡例(8カ月)を除くと、開腹後10年2例および1年1例で発症よりの期間を含めると最長16年であり、いずれも生存中である(表5)。

III. 考 案

Brodie および Bristowe がそれぞれ孤立性⁷⁾¹⁴⁾あるいは

多発性肝嚢腫¹⁾⁴⁾¹⁹⁾を記載し、その後多くの症例が報告されてきたが、発生頻度についてみると Eliason と Smith ら⁸⁾¹⁴⁾は2万例の剖検例中、孤立性非寄生虫性肝嚢腫28例を、Henson¹⁾、Gray および Docherty らは48年間に38例を報告している。本邦においては1967年まで188例を村上⁹⁾らが集計しており、徳永⁷⁾らは昭和36年から10年間に25例の手術例を集計している。教室例についてみると最近14年間に孤立性6例、多発性5例を経験した。男女比では孤立性嚢腫において女性が男性の3~4倍⁶⁾⁹⁾と云われ、教室例では小児例が男性で他の5例は女性であつた。多発性嚢腫では Davis⁹⁾は男女比は1:2であると述べ、Comfort¹⁰⁾らは24例において1:5であつたと報告している。発生年齢は小児から高令者⁹⁾までにおよび、一般には40才台から50才台に最も発生頻度が高いといわれているが、私どもの症例では50才台⁶⁾⁹⁾が5例、60才台が3例であり、その他が3例であつた。1906年 Moschocowitz¹¹⁾は孤立性非寄生虫性肝嚢腫の成因を迷入胆管に求めて以来、肝嚢腫に対する Jones¹²⁾、Henson¹²⁾ およびその他の人々⁹⁾による分類がみられるが、成因は必ずしも明らかでなく多元的なものである。教室例では先天的なものと考えられるが組織学的に胆管に関連があるとみられる2症例があつた。腎嚢腫との合併⁹⁾¹⁰⁾は多発性嚢腫の2例に認められたが、一般にも腎との合併が比較的多いとされている。

多くの肝嚢腫は発育が緩慢であるため腫瘤に気付かず、可成りの大きさに達して自覚され、また症状が出現するが、Henson¹⁾らは発症から入院までの期間は平均3年であると述べている。私どもの症例でもこの期間の最長は実に9年であり、1年以上におよぶものは5例であ

表5 教室例における初発症状出現から来院までの期間と術後経過

症 例	初発より来院までの期間	手術後の期間	昭和35年 - 48年	
			全経過期間	転 帰
孤立性	1) M.S. 55 才 ♀	1ヶ月	14 年	14年1ヶ月 生 存
	2) A.S. 40 才 ♀	1 年	12 年	13年 生 存
	3) K.K. 34 才 ♀	9 年	10 年	19年 生 存
	4) K.K. 59 才 ♀	2ヶ月	2 日	2ヶ月2日 死 亡 [※]
	5) A.S. 2才2ヶ月 ♂	3ヶ月	5 年	5年3ヶ月 生 存
	6) M.S. 52 才 ♀	2 年	4 年	6年 生 存
多発性	1) M.N. 59 才 ♀	6 年	10 年	16年 生 存
	2) A.T. 64 才 ♂	2 年	10 年	12年 生 存
	3) K.S. 63 才 ♂	2ヶ月	8ヶ月	10ヶ月 死 亡
	4) I.Y. 55 才 ♂	4 日	1 年	1年4日 生 存
	5) M.K. 65 才 ♂	6ヶ月	14 日	6ヶ月14日 死 亡 [※]

※ 手術死

る。一方、発症から比較的短期間で入院した症例は大部分が胆石症や肝炎などの合併症の発現で肝囊腫が診断されている。Comfort¹⁰⁾らは多発性囊腫例で胃空腸潰瘍、胆石症、胃癌などの、Clark⁸⁾らは孤立性囊腫例で胆石症あるいは水腎症の合併を報告している。本症の長期間にわたる疼痛および上腹部不定愁訴などの症状は、上述の合併症が発現すれば見逃されたり、合併症の症状と鑑別が不能となる。

臨床検査所見では可成り大きなものでも著しい異常は示さないとされている。教室例では大きな囊腫例に中等度の貧血と低蛋白血漿がみられ、肝機能所見では合併症による異常の他にB S P値¹⁰⁾とAlkaline phosphatase値の軽度の異常が認められた。

肝囊腫の術前確定診断は困難⁹⁾であるといわれるが、私どもの症例においても術前診断がなされたのは11例中、孤立性2例と多発性1例に過ぎなかつた。とくに肝悪性腫瘍と診断されたものが4例あり、これらの症例は開腹により確認されている。シンチグラム¹³⁾による診断がなされているが、本法は存在および部位の判断が可能であるとしても質的診断は不可能であり、他の良性腫瘍との鑑別も困難といわざるを得ない。肝動脈造影法¹³⁾の導入によりある程度の質的診断が可能となり、私どもも2例に実施している。囊腫の主な所見としては肝内動脈枝の圧排¹⁴⁾、変位および伸展所見と肝毛細血管相における陰影欠損像であるが、Pollard¹⁵⁾らは多発性囊腫の造影において同様の所見を記載している。本法は有力な診断法であるが、なお他の良性腫瘍や悪性腫瘍でもHypovascularあるいはavascularのtypeを示す症例では鑑別困難な場合があると思われる。一般には腹腔動脈造影が行われるが、近年超選択的肝動脈造影¹⁶⁾が実施されるようになり、囊腫辺縁の血管性状が解明され診断の助けとなると期待される。Richmond⁹⁾は肝囊腫壁より発生したとみられる悪性腫瘍を報告しているが、他方肝癌が囊腫様所見を呈する症例¹⁷⁾もあり、私どもは4例経験し、そのうちの1例¹⁸⁾は右葉部分切除後5年の現在生存中である。

孤立性囊腫に対しては囊腫別出術、囊腫を含む肝切除術などが根治的治療法として行われるが、姑息的治療法として単純穿刺、切開排液および内外瘻造設などが実施されている。多発性囊腫に対しては姑息的療法が主体をなすが、Lin¹⁹⁾らは独自の手術方法を報告しており、それによると囊腫内に胆汁が認められなければ隣接囊腫をトンネルで連絡し腹腔内に開放しておくことと述べ良好な成績を示している。私どもの症例では孤立性囊腫に対し5例の肝切除が行われ、多発性囊腫では1例が拡大右葉切

除を受けている。しかし孤立性囊腫の右葉切除の1例は術後出血で、多発性囊腫の拡大右葉切除の1例は合併していた慢性肝炎の増悪で14日目に失っている。このように可成りの積極的な手術法が実施されているが、本症はあくまで良性疾患であるため個々の症例に応じた手術方法の選択が必要であり、過大侵襲にならぬよう、とくに注意をはらうべきである。本症の予後は思つたより良好⁶⁾¹⁹⁾であり、今までの報告をみても術後可成り長期間の生存を得ており、私どもの症例でも手術死と胃癌合併例を除けばいずれも生存中で、術後最長例は14年になるが、発症よりの最長経過例は19年にもおよんでいる。したがってそれぞれの病態に適した治療が行われれば本症の予後は可成り期待されると思われる。

IV. 結 語

過去14年間、教室において経験した非寄生性孤立性肝囊腫6例および多発性肝囊腫5例につき報告したが、とくに診断と合併症および手術と予後につき言及した。

稿を終るにのぞみご校閲を頂戴した宮崎逸夫教授に感謝の意を表す。

文 献

- 1) Henson, S.W., et al.: Benign tumors of the liver III. Solitary cysts. *Surg. Gynec. Obstet.*, 103: 607—612, 1956.
- 2) Henson, S.W., et al.: Benign tumors of the liver IV. Polycystic disease of surgical significance. *Surg. Gynec. Obstet.*, 104: 63—67, 1957.
- 3) 菅原克彦ほか: 肝,胆道の良性腫瘍,臨外, 24: 1095—1105, 1969.
- 4) Schwartz, I.S.: *Surgical diseases of the liver.* McGraw-Hill Co. 1964.
- 5) Richmond, H.G.: Carcinoma arising in congenital cysts of the liver. *J. Path. Bact.*, 72: 681—683, 1956.
- 6) 村上邦康ほか: 孤立性非寄生性肝囊腫の1例及び本邦における真性肝囊腫の統計的観察, 外科治療, 21: 721—728, 1969.
- 7) 徳永慎介ほか: 巨大な非寄生性肝囊腫の治験例, 外科診療, 14: 1443—1447, 1972.
- 8) Clark, D.D., et al.: Solitary hepatic cysts. *Surg.*, 61: 687—693, 1967.
- 9) Davis, C.R.: Non-parasitic cysts of liver. *Am. J. Surg.*, 35: 590—594, 1937.
- 10) Comfort, M.W., et al.: Polycystic disease of the liver: a study of 24 cases. *Gastroenterology*, 20: 60—78, 1952.
- 11) Moschocowitz, E.: Non-parasitic cysts (congenital) of the liver with a study of aberrant bile ducts. *Am. J. M. Sc.*, 131: 674—699, 1906.

- 12) Jones, J.F., et al.: Removal of retentive cyst from the liver. *Ann. Surg.*, 77: 68—89, 1923.
- 13) Belcher, H.V., et al.: Nonparasitic cysts of the liver: Report of three cases. *Surg.*, 65: 427—431, 1969.
- 14) 高橋正彦ほか: 多発性非寄生虫性肝嚢腫の1例, 臨外, 28: 1481—1483, 1973.
- 15) Pollard, J.J., et al.: Angiographic diagnosis of benign diseases of the liver. *Roentgenology*, 86: 276—283, 1966.
- 16) Takashima, T., et al.: Transfemoral super-selective celiac catheterization; Technical considerations. *Am. J. Roentgenol., Rad. Therapy & Nuclear Med.*, 113: 280—282, 1971.
- 17) 小坂 進ほか: 嚢腫形成型肝癌について, 日外会誌, 71: 1292—1294, 1970.
- 18) 木南義男ほか: 原発性肝癌に対する外科治療の成績, 日瘡治, 9: 44—50, 1974.
- 19) Lin, T. et al.: Treatment of non-parasitic cystic disease of the liver. *Ann. Surg.*, 168: 921—927, 1968.