

リンパ節転移を伴った biliary cystadenocarcinoma の 1 切除例

大三輪病院外科, *同 内科

福岡 敏幸 吉川 高志 澤田 秀智

浅生 幸郎 松山 義則*

奈良県立医科大学第1外科, *同放射線科

白鳥 常男 深井 泰俊 打田日出夫*

県立奈良病院中検病理

松 森 武

A RESECTED CASE OF BILIARY CYSTADENOCARCINOMA WITH LYMPH NODE METASTASIS

Toshiyuki FUKUOKA, Takashi YOSHIKAWA, Hidetomo SAWADA,
Yukio ASAO¹⁾, Yoshinori MATSUYAMA²⁾, Tsuneo SHIRATORI³⁾,
Yasutoshi FUKAI³⁾, Hideo UCHIDA⁴⁾ and Takeshi MATSUMORI⁵⁾

Department of Surgery¹⁾ and Department of Internal Medicine²⁾, Omiwa Hospital
First Department of Surgery³⁾ and Department of Radiology⁴⁾, Nara Medical University
Pathology Division of Central Laboratory Department, Nara Hospital⁵⁾

索引用語 : biliary cystadenocarcinoma

I. はじめに

Biliary cystadenocarcinoma は肝の嚢胞性悪性腫瘍で、著者が文献上集計したところでは本例を含めて41例が報告されているにすぎないまれな疾患である¹⁾²⁾。最近、著者らは本症の一例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

II. 症 例

患者 : 59歳, 女性。

主訴 : 右季肋部痛, および発熱。

家族歴 : 父が膵頭部癌にて死亡。

既往歴 : 32歳時に腸閉塞で開腹術をうける。

現病歴 : 昭和59年1月ごろより時々心窩部痛出現し、近医にて投薬うけ軽快していた。同年6月5日、著明な右季肋部痛および発熱が出現し前医受診、投薬を受けるが軽快せず当院へ紹介され入院する。

入院時現症 : 体格中等度, 栄養良, 眼瞼結膜貧血なく、眼球強膜に軽度黄染を認めた。胸部には打聴診上異常なく、腹部は平坦軟で、肝脾腎は触知せず、心窩部に軽度の圧痛を認めた。なお下腹部正中に手術瘢痕

を認めた。

入院時検査成績 : 白血球数 $12,000/\text{mm}^3$ と上昇, 総ビリルビン $3.2\text{mg}/\text{dl}$, GOT $168\text{IU}/\text{l}$, GPT $63\text{IU}/\text{l}$ と軽度高値を示したが、他の検査成績に異常を認めなかった。

入院後の臨床経過 : 入院時 38°C の発熱と腹痛を認めCRP 5+, 白血球数 $12,000/\text{mm}^3$ と高値を示したが、抗生剤の投与とともに解熱、腹痛消失し、これら検査所見の改善がえられた。

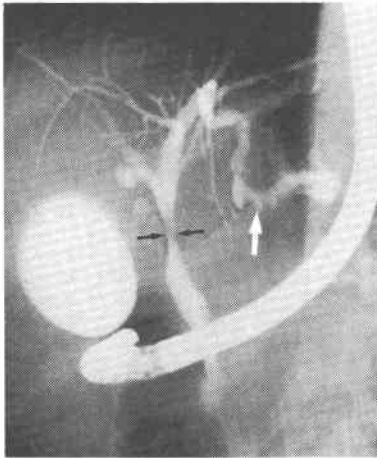
腹部超音波検査所見 : 図1左に示すように肝左葉外側区域に $4.9 \times 3.9\text{cm}$ のSOL (space occupying lesion)を認め、内部エコーは不均一でhypoechoicであり腫瘤内の壊死が疑われた。また、壁の一部に腫瘍結節またはdebrisと思われるhigh echoicな部分がみられた。さらに、臍体部前面にも同様な直径 2.3cm の一部debrisを伴うhypo-anechoicな病変を認めた。

腹部 computed tomography (以下CTと略す) 所見 : 図1右に示すように、肝左葉外側区域にlow densityなSOLがみられ辺縁の不整と内腔へ突出する正常肝よりややlow densityな部分がみられた。このSOLは、contrast enhancementでも辺縁の一部を除いてlow densityのままであった。また臍体部前面に

図1 腹部超音波検査所見(左)およびCT所見(右).
肝左葉外側区域に4.9×3.9cmのhypoechoicな
SOLがみられた。



図2 ERCP所見. 肝左葉のSOLと肝内胆管の間に
交通性がみられ, 造影剤のSOL内への貯留が認め
られた(□). また, 三管合流部付近の総胆管に軽度
のsmoothな狭窄がみられた(→).



も同様な low density area がみられた。

Endoscopic retrograde cholangio-pancreaticography (ERCP) 所見: 図2に示すように肝左葉のSOLと肝内胆管の間に交通性がみられ, 造影剤のSOL内への貯留が認められた。また, 三管合流部付近の総胆管に軽度のsmoothな狭窄がみられた。

腹部血管造影所見: 図3に示すように, 左肝動脈ventral branchの圧排伸展がみられ, 矢印の部位にはわずかな濃染像がみられた。また, 脾の血管系には異常所見を認めなかった。

以上より脾原発のcystadenocarcinomaおよびその肝転移と診断し, 昭和59年7月23日手術を施行した。

開腹所見: 上腹部正中切開にて開腹, 肝左葉外側区域に黄色の表面不整な腫瘍を認めた。また脾前面にもcysticに腫大したNo. 8リンパ節1個を認め, これが

図3 腹部血管造影所見. 左肝動脈ventral branchの
圧排伸展がみられ, 矢印の部位にはわずかな濃染像
がみられた。

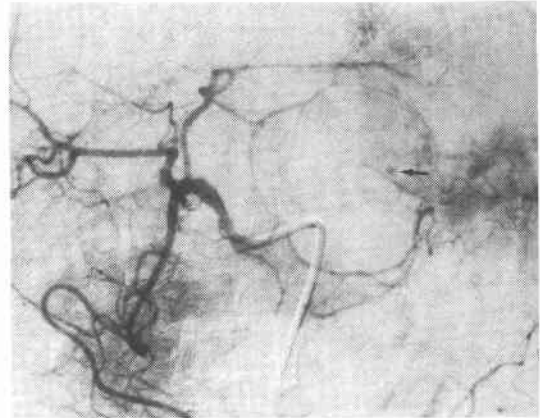
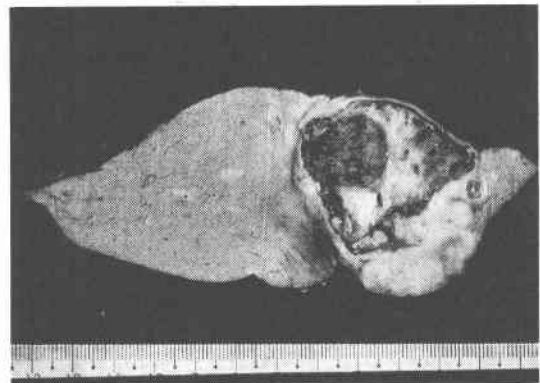


図4 摘出標本肉眼所見. 腫瘍は直径4.5cmで被膜で
覆われた内部には褐色の粘液を含む部分と充実性の
部分がみられた。

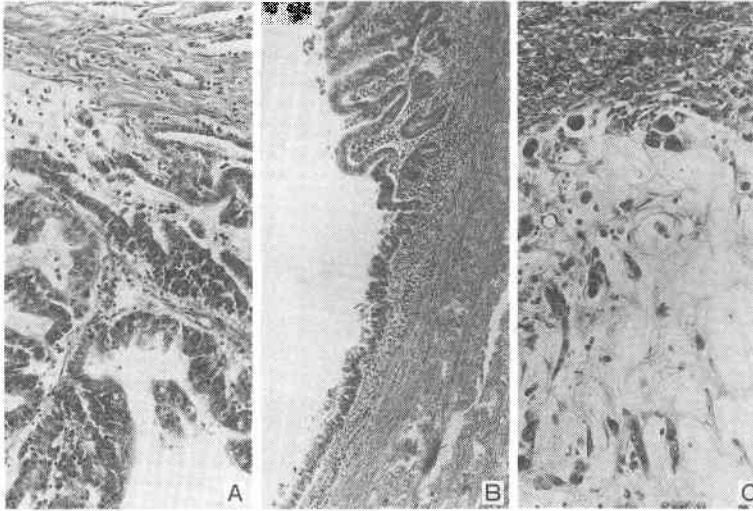


CT, 超音波検査でとらえられた脾前面のcystic lesionと考えられた。しかし, 脾自体には異常所見を認めなかった。さらにNo. 12リンパ節もcysticに腫大しており, ERCPでみられた総胆管の狭窄はこのリンパ節の腫脹によるものと思われた。肝癌取り扱い規約によるとStage IV (T₁, S₂ N₃ (+) Vp₀ Vv₀ B₀ IM₀ P₀ M₀)であった。根治切除不能の肝悪性腫瘍と考えられたので, 左外側区域切除により肝の腫瘍を切除するとともに, 数個の腫脹したリンパ節を摘出し手術を終えた。

摘出標本肉眼所見: 図4に示すように腫瘍は直径4.5cmで被膜で覆われ内部には褐色の粘液を含む部分と充実性の部分がみられた。

病理組織所見: 図5 Aに示すように嚢胞壁上皮はhyperchromatic atypismのある高円柱様上皮よりな

図5 病理組織所見。A：嚢胞壁上皮は hyperchromatic atypism のある高円柱様上皮よりなり papillary に増生していた。B：一部には一層の高円柱様上皮よりなる部分もみられ cystadenoma よりの癌化が考えられた。C：また嚢胞内には mucinous lake が形成されておりその中に tumor cell の浮遊も認められた。



り papillary に増生していた。しかし、一部には図 5 B に示すように一層の高円柱様上皮よりなる部分もみられ cystadenoma よりの癌化が考えられた。また図 5 C に示すように嚢胞内には mucinous lake が形成されておりその中に tumor cell の浮遊も認められた。

術後経過：経過良好にて術後29日目に退院したが、腫瘍細胞の胃幽門部浸潤に起因すると思われる突然の大量消化管出血のため再入院し術後105日に出血死した。

III. 考 察

Biliary cystadenocarcinoma は肝に生ずる嚢胞性悪性疾患であり、原発性肝癌取り扱い規約⁹⁾では胆管細胞癌の一型として分類されている。

発生原因：本症の発生については、non-parasitic liver cyst⁴⁾⁵⁾, benign cystadenoma^{1)6)~9)}などの良性肝嚢胞性疾患からの悪性化であるとする報告がある。Woods⁸⁾は良性の cystadenoma が数年の経過の後 cystadenocarcinoma に悪性化した例を報告しており、また他の報告例でも組織学的に良性の cystadenoma と悪性の cystadenocarcinoma の混在する像が認められたことから cystadenoma の悪性化とするものが多い^{1)7)~9)}。一方、嚢胞壁の良性部分が一層の立方上皮や円柱上皮または結合織の壁よりなっていることから、むしろ non-parasitic liver cyst よりの悪性化であるとする報告例もある⁴⁾⁵⁾。自験例では、嚢胞壁の一部に cystadenoma を思わせる単層の高円

柱様上皮からなる部分がみられ、biliary cystadenoma よりの悪性化が考えられた。

頻度：孤立性肝嚢腫の発生頻度については Geist¹⁰⁾ の193例、村上ら¹¹⁾の188例の集計があり決してまれな疾患とは言えない。一方 biliary cystadenoma および cystadenocarcinoma は極めてまれな疾患で、Ishak ら⁷⁾によると biliary cystadenoma は胆管由来の肝嚢腫のうち4.6%を占めるにすぎないとされ、cystadenocarcinoma はさらにまれとされている。著者が集計しえたところでは、今までに cystadenoma 51例、cystadenocarcinoma 40例が報告されているにすぎない。

年齢、性差：本症報告例の発症年齢は20歳台から70歳台にわたっており40~50歳台が最も多い¹⁾⁷⁾。性差では女性に好発し男性の約2倍の頻度である¹⁾⁷⁾。自験例は59歳女性であった。

臨床症状：主訴としては腹部腫瘤、腹部膨満感、腹痛が多く¹⁾⁷⁾、周辺の胆管系の圧迫により閉塞性黄疸を呈する症例も報告されている⁸⁾¹²⁾。

一方無症状で剖検または手術時に偶然発見されることもある⁷⁾。症状の発現は緩徐で多くは数カ月から数年の経過をとるが¹⁾⁷⁾、なかには腫瘍の穿孔により突然の腹痛、発熱を来すものもある¹⁾。自験例では、黄疸、発熱、右季肋部痛がみられ、入院後抗生剤の投与によりこれら臨床症状の改善がみられ、肝膿瘍類似の症状を呈した。

臨床検査成績および診断：一般臨床検査では、本症のおよそ1/3の症例でなんらかの肝機能検査の異常が指摘されているが⁷⁾、軽微な異常が多く本症に特有なものはない。

本症はCTでは肝内に境界明瞭な低吸収域として描出され、その内部に隔壁や乳頭状突出がみられると報告されている¹¹⁾¹²⁾¹³⁾。自験例でも低吸収域として描出され、その内部に乳頭状突出が認められた。超音波像では厚い隔壁や嚢胞壁とともに壁在性乳頭状結節を有する anechoic lesion が特徴的とされ¹²⁾¹⁴⁾¹⁵⁾、自験例でも壁在性乳頭状結節を有する hypoechoic lesion として描出された。血管造影では hypovascular lesion が主で腫瘍を取り巻くように肝動脈の圧排、伸張がみられるとされるが、嚢胞壁や壁在結節部に一致した異常血管および濃染像を指摘する報告もある^{11)12)~14)}。自験例においても、肝動脈の圧排伸張以外に嚢胞壁に一致したわずかな濃染像を指摘しえた。胆道造影に関しては本症に特有の所見はないが、黄疸発現例で肝内胆管の圧排、細小化を認めたとするものや⁸⁾、自験例の様に胆管と嚢胞腔の交通を指摘するものもある¹³⁾。その他本症の診断に関しては、超音波ガイド下に嚢胞の壁在腫瘍結節を生検して有用であったとする報告がある⁵⁾。

病理学的所見：肉眼的には単房性または多房性嚢胞性腫瘍で腫瘍壁から乳頭状に発育した充実性部分が見られるとする報告が多い^{1)4)~9)12)13)}が cystadenoma との鑑別は困難である。組織学的には異型性の強い腫瘍細胞が乳頭状に増殖するのがみられ、基底膜の消失を認めることもある^{1)4)~9)12)13)}。自験例では腫瘍細胞の乳頭状に増殖する部分との粘液の貯留する部分のみられ、また一部には cystadenoma より癌化を示唆する単層の高円柱様上皮からなる部分のみられた。

治療：嚢胞液吸引のみの治療では再発および再発による死亡例の報告が多く⁶⁾⁷⁾¹⁴⁾、肝区域切除のような根治的手術治療が必要であると考えられている¹¹⁾¹⁵⁾。自験例では開腹時広範なリンパ節転移からみられ根治切除不能と考えられたので、肝左葉外側区域切除および一部の腫脹したリンパ節の切除を行ったが、今後は肝区域切除による原発腫瘍の全切除のみではなく、さらに周辺リンパ節郭清を伴った根治的手術が必要であると考えられた。

予後：転移なく適切な治療が施されれば良好であるとする報告が多く、一般に胆管細胞癌よりも良好とされている⁷⁾。自験例は開腹時広範な腹腔内リンパ節転移がみられその一部を摘除したが、腫瘍細胞の胃幽門部浸潤に起因すると思われる突然の大量消化管出血の

ため術後105日目に死亡した。

IV. 結 語

著者らは、術前診断が困難な肝左葉の biliary cystadenocarcinoma の1例を経験したが、本症は極めてまれな疾患で、また組織学的に cystadenoma より癌化を示唆する所見も得られたので報告した。

なお、本論文の要旨は第42回日本消化器病学会近畿地方会において発表した。

文 献

- 1) 播磨洋子, 白石友邦, 蝶良愛郎ほか：腹腔内に穿孔した Biliary cystadenocarcinoma の1例。癌の臨 30：93—98, 1984
- 2) Moore S, Gold RP, Lebowitz O et al：Adenocarcinoma of the liver arising in biliary cystadenocarcinoma. J Clin Gastroenterol 6：267—275, 1984
- 3) 日本肝癌研究会編：原発性肝癌取扱い規約。東京、金原出版、1983、p00—00
- 4) 星野輝彦, 後藤裕己, 加藤 泰ほか：悪性化した真性肝嚢腫の1例。外科 37：1094—1098, 1975
- 5) Iemoto Y, Kondo Y, Nakano T et al：Biliary cystadenocarcinoma diagnosed by liver biopsy performed under ultrasonographic guidance. Gastroenterology 84：399—403, 1983
- 6) Woods GL：Biliary cystadenocarcinoma. Cancer 47：2936—2940, 1981
- 7) Ishak KG, Willis GW, Cummins SD et al：Biliary cystadenoma and cystadenocarcinoma. Cancer 39：322—328, 1977
- 8) 高島茂樹, 田中良則, 山口明夫ほか：肝右葉に発生した巨大な Cystadenocarcinoma の1例。癌の臨 26：192—198, 1980
- 9) 高橋正年, 天目純生, 笠原小五郎ほか：肝嚢胞腺癌の1例。臨外 35：1329—1334, 1980
- 10) Geist DC：Solitary nonparasitic cyst of the liver：Review of the literature and report of 2 patients. Arch Surg 71：867—880, 1955
- 11) 村上邦康, 船岡宏明, 大城幸治ほか：孤立性非寄生虫性肝嚢腫の1例及び本邦における真性肝嚢腫の統計的観察。外科治療 21：721—728, 1969
- 12) 大友 邦, 古井 滋, 吉川宏起ほか：Biliary cystadenocarcinoma の1例。臨放線 27：1469—1472, 1982
- 13) 久木原上子, 山口和志, 小山隆夫ほか：Biliary cystadenocarcinoma の2例。臨放線 28：1587—1590, 1983
- 14) Stanley J, Vujic I, Schabel SI et al：Evaluation of biliary cystadenoma and cystadenocarcinoma. Gastrointest Radiol 8：245—248, 1983
- 15) Carroll BA：Biliary cystadenoma and cystadenocarcinoma：Gray scale ultrasound appearance. JCU 6：337—340, 1978