

## 胆嚢癌を併存したcholedochocoeleの1例

順天堂大学第1外科

塩見 精朗 小林 滋 中川 浩之  
 林田 康男 前川 武男 榊原 宣  
 同 第1病理  
 平井 周 和田 了 桑原 紀之

### A CASE OF CHOLEDOCHOCELE WITH CARCINOMA OF THE GALLBLADDER

Seiro SHIOMI, Shigeru KOBAYASHI, Hiroyuki NAKAGAWA,  
 Yasuo HAYASHIDA, Takeo MAEKAWA and Noburu SAKAKIBARA

First Department of Surgery, Juntendo University School of Medicine

Syu HIRAI, Ryo WADA and Noriyuki KUWABARA

First Department of Pathology, Juntendo University School of Medicine

索引用語：胆嚢癌, choledochocoele

#### I. はじめに

先天性胆道拡張症は1852年Douglas<sup>1)</sup>の報告が最初といわれている。本邦では1905年佐久間<sup>2)</sup>の報告以来、多数の症例が報告されており、欧米に比べ比較的多くみられる疾患である。しかし、その大部分はAlonso-Lej<sup>3)</sup>分類のI型であり、III型すなわちcholedochocoeleはきわめてまれである。胆嚢癌を併存したcholedochocoeleの1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：53歳，女性。

主訴：上腹部不快感。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：38歳時，甲状腺腫。

現病歴：昭和62年8月に近医で肝機能障害と胆嚢ポリープを指摘され，同年9月に当院を受診し，精査目的で入院となった。

入院時現症：体格は中等度で，栄養は良好。眼瞼結膜，眼球強膜に貧血，黄疸はなく，胸部に理学的異常所見なし。腹部は平坦で，肝・脾および腫瘤は触知せず，圧痛もなかった。

入院時検査成績：中等度の肝機能障害と軽度の胆道系酵素の上昇を認めた（表1）。

表1 入院時検査成績

WBC	7600 /mm <sup>3</sup>	LAP	574 GRU
RBC	454 ×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	γ-GTP	296 U/l
Hb	14.1 g/dl	TTT	34.6 U
Ht	42.1 %	ZTT	23.5 U
Plt	23.5 ×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	TP	7.3 g/dl
T-Bil	1.1 mg/dl	Alb	4.0 g/dl
D-Bil	0.5 mg/dl	s-Amylase	191 IU/ml
ALP	14.3 KAU	CA19-9	10 U/ml
GOT	218 IU/l	CEA	1.6 ng/ml
GPT	149 IU/l	AFP	30 ng/ml
LDH	690 IU/l	ICG R <sub>15</sub>	17.2 %

超音波検査では胆嚢は2房性で，胆嚢底部および頸部にそれぞれ約3cm大と約1.5cm大の内部エコーが不均一な隆起性病変を認めた。また，腹部computed tomographyでは胆嚢内腔に突出する不整な隆起性病変を認めた（図1）。

内視鏡的逆行性膵胆管造影では胆嚢底部および頸部に不整形乳頭状の陰影欠損像を認めた。また総胆管末端部は嚢腫状に拡張しており，その拡張部に膵管が合流していた（図2）。また嚢腫最大径は19mmであり，嚢腫内粘膜生検では胆管粘膜であった。

選択的肝動脈造影では胆嚢動脈の不整像と胆嚢に一致した腫瘍濃染像を認めた（図3）。

以上より，胆嚢癌を併存したcholedochocoeleと診断し，手術を施行した。

手術所見：右季肋下切開で開腹。漿膜および肝に浸潤はなく，肝十二指腸間膜内リンパ節腫大が認められ

<1988年12月14日受理> 別刷請求先：塩見 精朗  
 〒113 文京区本郷2-1-1 順天堂大学医学部第1外科

図1 超音波像およびCT像。胆嚢底部および頸部に不整な隆起性病変を認める。

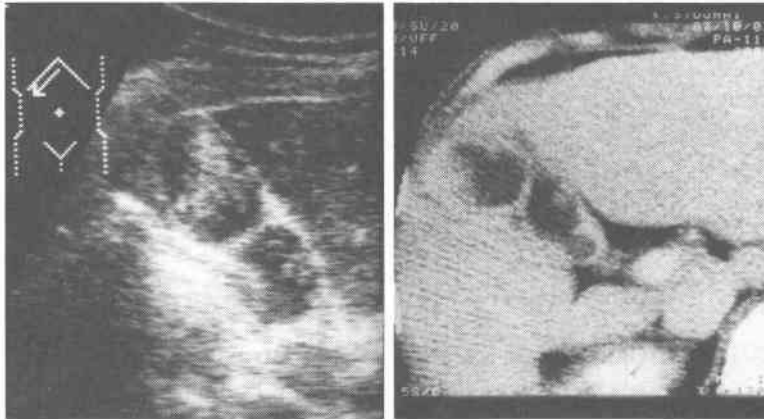
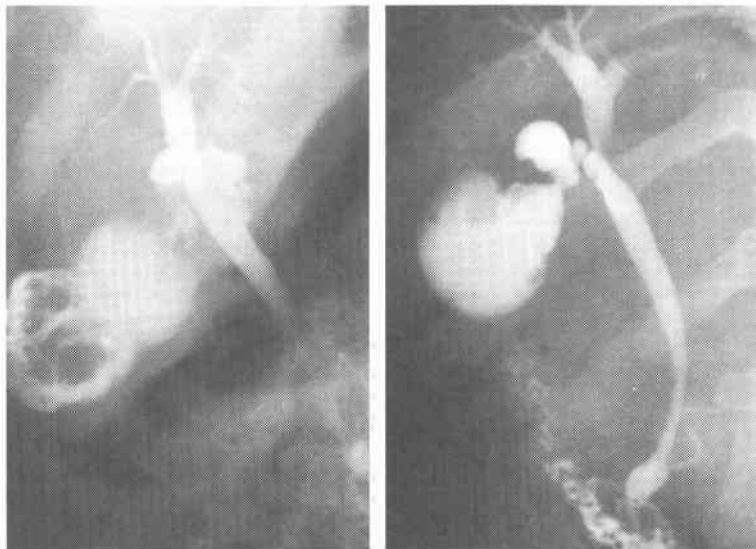


図2 ERCP像。胆嚢底部および頸部に不整形陰影欠損像がみられ、また総胆管末端部が嚢腫状に拡張し、その拡張部に膝管が合流している。



た。胆嚢摘出、肝床切除術およびリンパ節郭清を行い、胆嚢癌取り扱い規約<sup>4)</sup>でいうGfn S<sub>0</sub>Hinf<sub>0</sub>H<sub>0</sub>B<sub>0</sub>P<sub>0</sub>N<sub>1</sub>M (-) St (-) Stage II, R2であった。また、十二指腸授動時にVater乳頭部に一致して腫瘤が触知された。

切除標本：胆嚢底部に4.5×2.5cm大のカリフラワー状に発育する隆起性病変を認め、頸部にも2.5×1cm大の不整卓な隆起性病変を認めた(図4)。

病理組織学的所見：胆嚢の2つの隆起性病変はともに乳頭状に発育する高分化型腺癌で、胆嚢底部では漿

膜下層まで浸潤していた(図5)。また頸部では筋層までの浸潤であり、肝十二指腸間膜内胆管周囲リンパ節(12b<sub>1</sub>)に転移を認めた。

肝嚢内胆汁検査：amylaseは52410IU/L, phospholipase A<sub>2</sub>は1900pmol/ml/min, tripsinは35500ng/ml, lysolecithinは54%と高値を示していた。

術後経過：とくに合併症もなく順調に経過し、術後19病日軽快退院した。

図3 選択的肝動脈造影像。胆嚢動脈の不整像と胆嚢に一致した腫瘍濃染像(矢印)を認める。

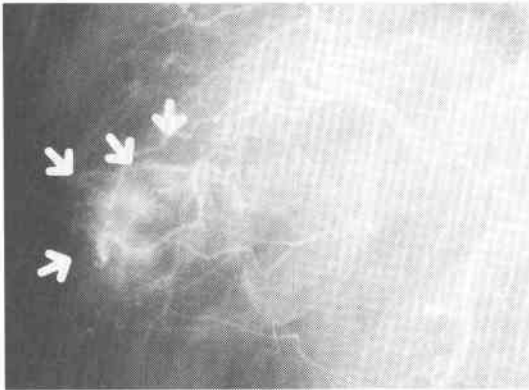
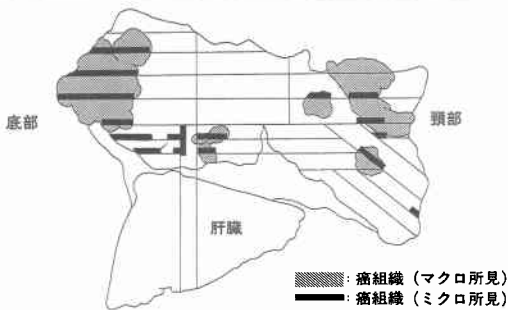
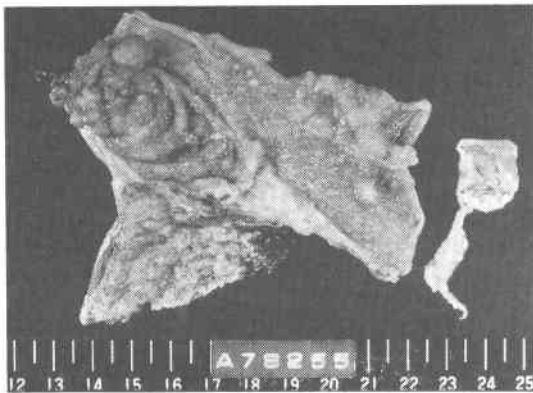


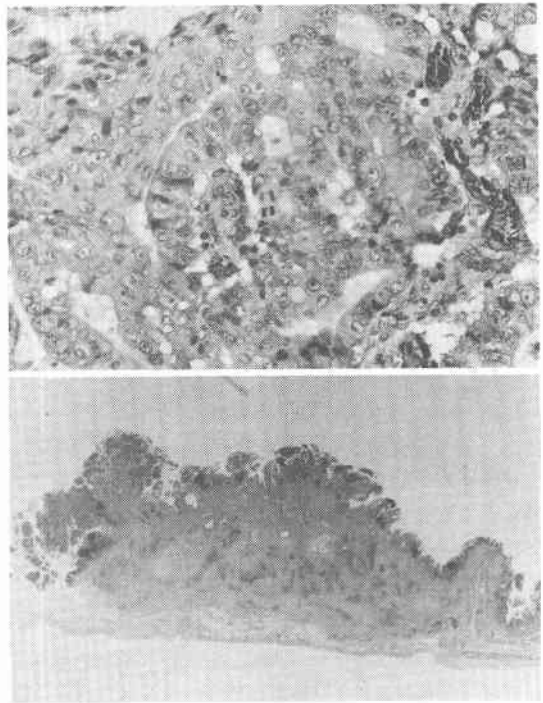
図4 切除標本、胆嚢底部にカリフラワー状の隆起性病変と、頸部にも不整な隆起性病変を認める。下段はそのシェーマである。



III. 考 察

Alonso-Lej<sup>9)</sup>は先天性胆道拡張症をI型は嚢腫型、II型は憩室型、III型はcholedochocoeの3型に分類した。Scholz<sup>9)</sup>はcholedochocoeをIIIa型は総胆管末端部の嚢腫状拡張、IIIb型は総胆管から十二指腸壁内に憩室状に嚢腫を形成するものと2型に分類した。

図5 病理組織像。組織型は高分化型の腺癌である(上段、HE染色×400)、胆嚢底部では漿膜下層への浸潤がみられる(下段、HE染色×4)。



嚢腫内粘膜に関してI型およびII型は胆管粘膜で十二指腸粘膜はないが、Alonso-LejのいうIII型の嚢腫内粘膜は十二指腸粘膜である。しかし自験例を含め胆管粘膜の症例もみられ、III型はI型やII型と発生学的および病理学的に同一とは考えにくいことが推察されている。またIII型は膵胆管合流異常は併存しないとされているが、自験例を含め膵胆管合流異常を示唆する症例があり、いまだIII型の概念が確立されていないのが現状である。

表2 年齢と嚢腫最大径

( ): 症例数

年齢(歳)	嚢腫最大径(mm)	~20	21~40	41~	記載なし	計
20~			1		2	3
30~			1	1	3	5
40~					5	5
50~	5				5 (2)	10 (2)
60~	2	2			6 (1)	10 (1)
70~	1				3	4
80~					1	1
計		8	4	1	25 (3)	38 (3)

わが国の先天性胆道拡張症集計例では大部分が Alonso-Lej I型で、II型およびIII型は非常にまれである。文献的に調べた限りIII型の本邦報告例は38例にすぎなかった<sup>6)7)</sup>。

うちIIIa型は自験例を含め19例、IIIb型は5例、不明例は14例であった。以下、この38例について検討を行った。

本症診断時の年齢は20歳から81歳、平均52.4歳であった。先天性胆道拡張症全体では60%が10歳以下で発見されており<sup>8)</sup>、本症の年齢分布は他の型に比べ明らかな差異がみられた。また、男女比は先天性胆道拡張症全体では1:4と女性に多いといわれているが<sup>8)</sup>、本症では男性19例、女性19例で性差を認めなかった。

臨床症状は心窩部痛、右季肋部痛、発熱、嘔吐、および黄疸などが多く、他の先天性胆道拡張症にしばしばみられる腫瘤触知例はなかった。

診断は内視鏡的逆行性膵胆管造影や経皮経肝胆道造影などの直接胆道造影によってなされることが多く、今後本法の普及によって報告数も増加すると思われる。

嚢腫最大径は自験例を含め記載のあった13例では7mmから55mmであった。年齢と嚢腫最大径との関係をみると、若年者に嚢腫径が大きい傾向がみられた(表2)。

併存疾患は胆石症が19例と最も多く、その存在部位は胆嚢内9例、胆管内5例、胆嚢・胆管内5例であった。choledochocoeleにおける胆石形成の機序は胆汁のうっ滞、逆行性感染などが考えられている。また、膵炎の併存が4例にみられ、choledochocoele内胆汁の膵管への逆流のためと考えられている<sup>11)</sup>。

癌併存例は自験例を含めて3例(7.9%)で、胆嚢癌が2例、胆管癌が1例であった。先天性胆道拡張症全体での癌合併率は2.5~15%<sup>8)~10)</sup>といわれているが、本症についてはいまだ報告例が少なく癌併存に関してなお不明な点が多い。先天性胆道拡張症における胆道癌発生の機序として膵・胆管合流異常による膵液の胆道内逆流が関与しているといわれており<sup>9)</sup>、自験例でも胆嚢内胆汁のamylase, phospholipase A<sub>2</sub>, tripsin, lysolecithinが高値で、膵液の逆流が示唆された。

治療は膵液の逆流防止を考慮して、嚢腫切除や乳頭形成術などが行われてきたが、最近では内視鏡的乳頭

括約筋切開術が広く行われるようになっている。しかし、胆道系悪性疾患併存例もみられるので、治療後も厳密な経過観察が必要と考えられる。

#### IV. 結 語

先天性胆道拡張症のAlonso-Lej分類III型、いわゆるcholedochocoeleに胆嚢癌を併存した1例を経験したので報告するとともに、本邦報告例38例について若干の検討を行った。

本論文の要旨は第197回日本消化器病学会関東地方会において発表した。

#### 文 献

- 1) Douglas AH: Case of the common bile duct. Monthly J M Sc London 14: 97, 1852
- 2) 佐久間章一郎: 輪胆管うっ滞嚢腫について. 岡山医学会誌 17: 49-73, 1905
- 3) Alonso-Lej F, Rever WJR, Pessagno DJ et al: Congenital choledochal cyst, with a report of 2 and an analysis of 94 cases. Int Abstr Surg 108: 1-30, 1959
- 4) 日本胆道外科研究会編: 外科・病理胆道癌取扱い規約. 第2版. 金原出版, 東京, 1986
- 5) Scholz FJ, Carrera GF, Larsen CR et al: The choledochocoele; Correlation of radiological, clinical and pathological findings. Radiology 118: 25-28, 1976
- 6) 長沢貞夫, 田中昌宏, 関 秀一ほか: Choledochocoeleの2症例—Endoscopic papillotomy施行—. 日消病会誌 80: 1490-1495, 1983
- 7) 鍵山惣一, 岡崎和一, 山本泰朗ほか: Choledochocoeleの4症例—付, 本邦報告20症例の文献的考察—. Gastroenterol Endosc 28: 1895-1901, 1986
- 8) Crittenden SL, Maekinley MJ: Choledochal cyst. Clinical features and classification. Am J Gastroentrol 80: 643-649, 1985
- 9) 高橋日出雄, 翁 伯東, 宮本繁方ほか: 成人における先天性胆管拡張症と胆嚢癌の合併—本邦報告例の検討—. 胆と膵 6: 227-233, 1985
- 10) 松原久裕, 坂本昭雄, 竜 崇正ほか: 拡張胆管切除術後に肝門部胆管癌発生をみた先天性胆管拡張症の1例. 日消外会誌 20: 2778-2781, 1987
- 11) Goldberg PB, Long WB, Oleaga J et al: Choledochocoele as a cause of recurrent pancreatitis. Gastroenterology 78: 1041-1045, 1980