

胆摘後の総肝管神経腫の1例

練馬総合病院外科, *同 内科

横田 昌明 飯田 修平 戸嶋 暢之

宇山 一朗 鳥浜 慶嗣*

総胆管結石症に胆管壁内神経腫を合併した1例を経験した。症例は63歳の女性で右季肋部痛と黄疸を主訴として入院し、逆行性胆道造影で総胆管結石および3管合流部付近に8年前の胆摘術の影響と思われる軽度の狭窄を指摘された。手術を行ったところ遺残胆嚢管はなく、総肝管右壁内に長径7mm, 1/3周におよぶ弾性硬の腫瘤を触知した。総胆管を切開し、直径9mm大のビリルビン系結石を摘出した。腫瘤は粘膜側には露出していなかったため胆管癌ではないと診断し、腫瘤を漿膜側より核出し、総胆管内にTチューブを留置した。摘出した腫瘤は、組織学的には神経腫であり、8年前の胆摘術に起因するものと考えられた。狭窄部に対しては、術後直径9mm, 長さ40mmのballoon dilation catheterを用いて60分間の拡張術を10日間隔で4回施行し、経時的な改善をみた。術後12か月目の経静脈性胆道造影では同部の再狭窄を認めなかった。

Key words: amputation neuroma, benign biliary tract stenosis

はじめに

胆嚢摘出術（以下胆摘術）後、胆嚢管断端もしくは胆管壁、その周囲に神経腫の増殖をみることは古くから知られているが¹⁾、その臨床報告はまれである。最近われわれは8年前の胆摘術に起因すると思われる壁内神経腫によって、総肝管に狭窄を来した症例を経験したので報告する。併せて本邦報告例を集計し、若干の文献的考察を加える。

症 例

患者：63歳，女性。

主訴：黄疸，右季肋部痛。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和55年，胆石症の診断のもとに他院で胆摘術をうけた。昭和63年11月，黄疸および右季肋部痛の精査を主訴として当院内科に入院した。総胆管結石症の診断で手術をすすめられ，外科に転科した。

入院時現症：身長155cm，体重56kg，皮膚および眼球結膜の黄染は，外科転科時には視診上明らかでなかった。表在リンパ節は触知せず，上腹部正中に前回の手術創が見られた。右季肋部に抵抗を認めたが自発痛はなく，腫瘤も触知しなかった。

入院時一般検査：総ビリルビン5.8mg/dl，直接ビリ

ルビン4.7mg/dl，GOT 130 IU/l，GPT 158 IU/l， γ GTP 623 IU/l，LAP 308 IU/l，ALP 1,196 IU/lと肝細胞障害を伴う閉塞性黄疸の所見が認められた。貧血はなく，腫瘍マーカーも正常値範囲内であった。

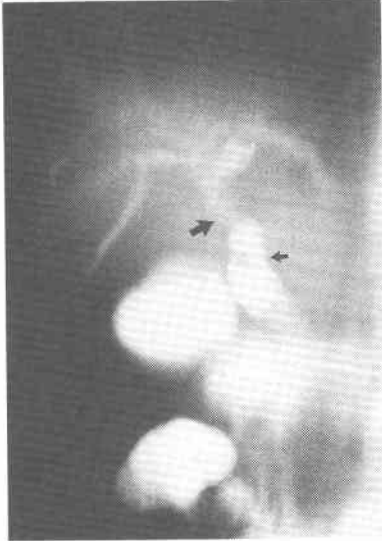
内視鏡的逆行性膵胆管造影（endoscopic retrograde cholangiopancreatography，以下ERCPと略記）所見：長径1cm大の卵円形の総胆管結石1個を認めた。3管合流部付近に前回行われた手術の影響と思われる，軽度の狭窄が約1cmにわたって認められたが，狭窄部は限局性でその辺縁は比較的平滑であった。遺残胆嚢管は造影されなかった（Fig. 1）。

腹部 computed tomography（以下CTと略記）所見：肝内胆管および総肝管の拡張は認められなかった。膵頭部，肝実質および肝門部にも明らかな占拠性病変はなく，悪性疾患を疑う所見はなかった。

手術所見：胆管癌の可能性も考慮したが，総胆管結石ならびに総肝管の癒着性狭窄と判断し，昭和63年12月9日，手術を施行した。

遺残胆嚢管はなく，初回手術時に胆嚢管を切断した部は不明であった。総胆管を切開し，直径9mm，褐色のビリルビン系結石1個を摘出した。さらにERCP上軽度の狭窄を認めた部位の右壁内に長径約7mm，1/3周におよぶ弾性硬の腫瘤を触知した。内腔を観察すると粘膜側には露出していなかったため，胆管癌ではないと診断した。狭窄は軽度であり，腫瘤は漿膜側から

Fig. 1 ERCP findings showing a stone in the common bile duct (small arrow), 1cm in diameter, and smooth narrowing in the upper portion of the bile duct which is presumed to be due to the former operation (arrow).



核出するに止どめ、Tチューブをステントとして留置した (Fig. 2).

病理組織学的所見：核出した腫瘍は直径約7mmの瘢痕様組織で、鏡検上は辺縁不整な結合織と神経線維が混在した組織像を呈していた。ほぼ正常と思われる

Fig. 2 Operative findings. There was a tumor, 7 mm in diameter, covered with normal mucosa at the right wall of the common hepatic duct (arrow). Resection of the tumor and T tube insertion was carried out.



Fig. 3 Photomicrograph of the tumor. (a): "Amputation neuroma" with proliferated hypertrophic nerve fibers in a nodular formation (arrow, H & E \times 10). (b): Photomicrograph showing the proliferated and disordered hypertrophic nerve fibers surrounded by fibrous connective tissue (H & E \times 50).

(a)

(b)

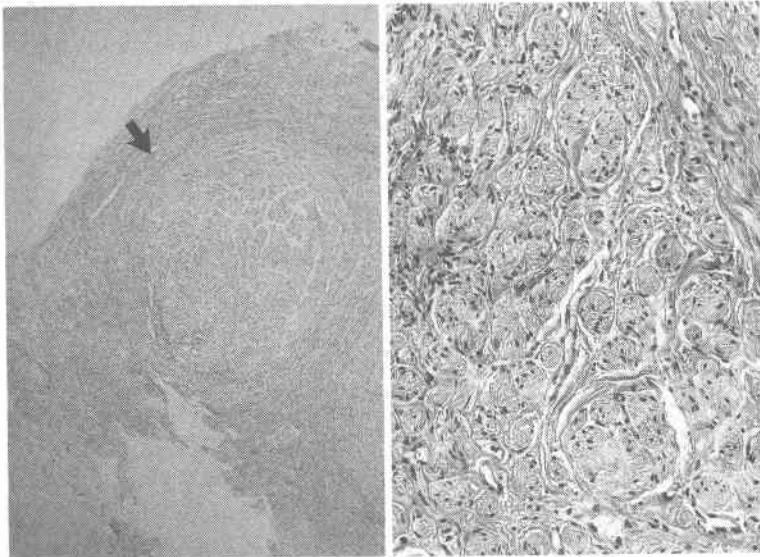


Fig. 4 Cholangiogram after repeated dilatation with the use of bougie. Stenosis of the common hepatic duct was improved.

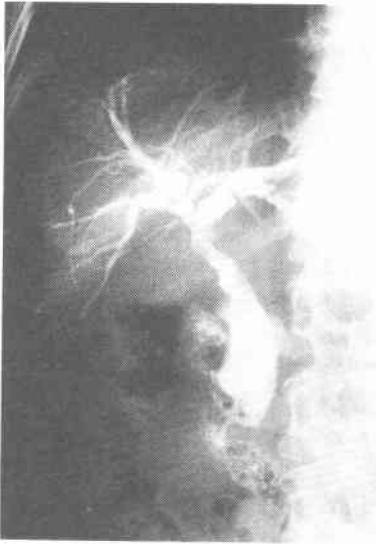


Fig. 5 DIC taken 12 months after the operation. Stenosis of the common hepatic duct was improved after repeated dilatation.



大小の神経線維は、神経束の密な集合により形成され、その間には多くの膠原線維を認めた。神経鞘細胞の増生も一部に見られるが、細胞異型、核分裂などの悪性像は認めなかった。前回の手術操作に起因する外傷性のものと考えた (Fig. 3)。

術後経過：術後はおおむね良好に経過したが、総肝管の狭窄に対して直径9mm、長さ40mmのballoon dilatation catheter (Cook社製)を用い、60分間の拡張術を10日間隔で合計4回施行した。狭窄は経時的に改善され、術後12か月目の経静脈性胆道造影 (drip infusion cholecysto-cholangiography, 以下DICと略記)では再狭窄を認めない (Fig. 4, 5)。

考 察

胆摘術後の胆管狭窄の多くは初回手術時の胆管損傷、胆嚢管結紮時のtenting、長期間Tチューブ留置などによる瘢痕性のものであるが²⁾、まれに神経腫による圧排をみることがある。神経腫neuromaは断端神経腫amputation neuromaともいわれ、外科的操作で切断された神経断端においてSchwann細胞および神経軸索が再生、増殖した肉芽組織であると規定されている¹⁾。原則的には神経を切断すればいかなる部分にも発生しうる、いわば損傷した神経線維の治癒機転による病態であって、Schwann細胞のみの腫瘍性増殖による神経鞘腫neurinoma (Schwannoma, neurilemmomaとも呼ばれる)とは質を異にするものである。

胆嚢および肝外胆管周囲には腹腔神経叢からの枝と迷走神経の肝枝、腹腔枝などが豊富に分布している。胆摘術や総胆管周囲の剝離操作によってこれらの神経が切断されて神経腫を形成することは古くから知られているが、その臨床報告例は比較的まれである。神経腫による症状出現の頻度について、古川らは胆摘術施行例350例に1例 (0.28%)と報告しているが³⁾、ほかの報告例でも500例~1,000例に1例とほぼ同様の数字であった⁴⁾。欧米では1928年、Husseinoffの剖検例¹⁾をはじめとして1989年までに62例が報告されているが、詳細な記載のあるものは28例にすぎない。一方本邦では、1968年の市場らの1例報告をはじめとして⁵⁾、以後20年間に自験例を含めて29例が報告されている³⁾⁻¹⁵⁾。以下に本邦報告例を集計して検討を加える。

まず、性別は男性16例、女性9例と男性に多かったが、欧米の報告例では両者に有意差はない。平均年齢は55歳であった。発症は初回術後4か月~23年と幅があり、平均すると11年になる。神経腫の発育が概して遅く、無症状の時期が長いことを示している。

症状としては交感神経刺激による疼痛、副交感神経刺激による消化不良、嘔吐のほか、壁内神経腫の圧迫による黄疸、胆管炎などの閉塞症状が知られている。前者が24例中14例 (58%)、後者が同じく20例 (83%)であった。病変の部位は胆嚢管断端3例に比べて、3

管合流部付近の総胆管あるいは総肝管壁内が20例と圧倒的に多く、前述の症状の傾向と相関関係を示している。また、胆管壁に発生したものでは、胆摘時の粗雑な操作による胆管の損傷や切開、Tチューブの挿入の影響との説があるが¹⁴⁾、初回手術時総胆管切開、Tチューブ挿入等胆道を操作したものは29例中7例と1/4に満たず、壁内神経腫の成因が必ずしも胆道操作に起因するとはいえないことが判る。Womackらは神経腫の発生防止には胆嚢管から神経線維を注意深く剝離し、胆嚢管と一緒に縛り込まないようにすべきと述べているが¹⁶⁾、前述の結果は3管合流部の剝離操作だけでも神経腫発生の原因になりうることを示しており、手術操作で本疾患を防止するのは現実的に不可能と考える。腫瘍の大きさは長径10mmをこえるものが12例(うち黄疸出現例7例)、10mm以下のものが4例(内黄疸出現例2例)であり、1cm以上の大きさで閉塞症状が出現するとの従来の説¹⁷⁾は一応うなずける。Bergeらは遺残胆嚢管の長さ和本症の発生には相関関係がないと述べているが¹⁸⁾、本邦においても同様であった。診断に際しては、先ず本疾患の存在を念頭におくことが大切であるが、留意すべき点として、

1) 胆摘術もしくは5番、12番のリンパ節郭清を行った胃癌根治術の手術既往がある。

2) 管外性の腫瘍であり、経皮経肝胆道造影(percutaneous transhepatic cholangiography, 以下PTCと略記)、ERCPなど画像診断上一側性かつ辺縁が平滑な圧排像、壁内性腫瘍の所見を呈す⁸⁾。

3) 積極的に悪性疾患と診断する所見に欠ける。

4) 術中所見として局所に占拠性病変を認めず、胆管切開時粘膜が正常で腫瘍が内腔に露出していない。などがあげられる。11例にPTC、11例にERCP、3例にDICが行われているが、前回の手術既往を考慮して25例中9例が術後胆道狭窄と診断されているにもかかわらず、断端神経腫と診断されたのはわずかに1例のみであり、本疾患の術前診断は極めて困難といわざるをえない。特に胆管壁および近傍に発生して同部の壁不整像や狭窄を呈することから25例中8例(32%)が術前悪性疾患と診断され、さらに25例中4例(16%)は臍頭十二指腸切除術など郭清を伴う拡大根治切除術を施行されている。この事実はまれな疾患であるが、悪性腫瘍の鑑別疾患としての本症の重要性を示唆しているともいえる。

本症例では、総肝管の狭窄が軽度であり、一過性に出現した黄疸はむしろ総胆管結石によるものと考えら

れた。術中所見から胆管癌が否定でき、腫瘍が長径7mmと管壁の1/3周にみたぬ小さなものであったことより腫瘍を核出し、Tチューブをステントとして留置する術式をとった。長期予後を考えるとき問題となるのは神経腫の再発と胆道の再狭窄であるが、前述のように神経腫は神経線維切断端の治癒機転の結果であり、核出操作でとり残した神経腫の組織が再増殖してくることはないはずである。さらに、狭窄部の切除と胆道再建の操作が新たな瘢痕化や神経腫の原因となる可能性を考えると、核出術および拡張術の方針は妥当なものであったと考える。総胆管の神経腫にたいして当術式をとった報告は他にみあたらないが、総胆管粘膜の過形成性ポリープに対して茎付着部での切除、Tチューブ留置という類似した術式で良好な結果を得たという報告がある¹⁹⁾。

良性胆道狭窄に対する胆管部分切除術および胆道再建術は3年以内に再狭窄をおこしやすいとの報告があるが²⁾、本例のような縮小手術でも少なくとも数年間は定期的に経過観察する必要があると思われる。経過中再度狭窄が起こるようならば2期的に胆道再建術を考えても遅くない。また、悪性を否定出来ない場合積極的に根治手術を行うべきとの意見もあるが²⁰⁾、術中迅速病理診断を行うなどして、可能な限り過大な侵襲を避けるべきである。

本論文の要旨は第34回日本消化器外科学会総会(平成元年7月、久留米市)において発表した。なお、本稿を終えるにあたり、御校閲を賜りました慶應義塾大学外科学教室都築俊治助教授に感謝いたします。

文 献

- 1) Husseinoff D: Ueber einen Fall von Wucherung des Nervengewebes nach Wiederholten Operationen der Gallengänge. Zentralbl Pathol 43: 344-348, 1928
- 2) 水本龍二, 永松良夫, 本庄一夫: 胆道の再手術—良性胆道狭窄を中心にして—. 手術 26: 1197-1203, 1972
- 3) 古川正人, 中田俊則, 山田隆平ほか: 胆管断端神経腫の1例. 胆と膵 2: 923-927, 1981
- 4) 岩佐 真, 中村菊洋, 北村 純ほか: 胆摘後閉塞性黄疸を来した断端神経腫の1例—本邦報告例の検討—. 胆と膵 9: 225-232, 1988
- 5) Ichiba S, Ikeda M: Erfolgreiche Operation bei einem Amputationsneurom des Gallenweges. Yonago Acta Med 12: 213-216, 1968
- 6) 楨 哲夫: 肝・胆道・膵疾患の外科. 金原出版, 東京, 1974, p260-265
- 7) 阿部秀一, 中野正高, 堀 博之ほか: 遺残胆嚢管症

- 状群の1例について, 外科診療 17:188-192, 1975
- 8) 武田 功, 中野 哲, 北村公男ほか: 胆摘後 Amputation Neuroma の1例, 日消病会誌 75: 760-763, 1975
- 9) 小西孝司, 永川宅和, 山口明夫ほか: 胆摘術後症候群—断端神経腫による閉塞性黄疸の1例—, 日消外会誌 12: 927-930, 1979
- 10) 宮菌 光, 秋山 洋, 竹内和男ほか: 臨床的に良・悪性の鑑別が困難であった胆管壁の Amputation Neuroma の1例, 胆と膵 2: 527-531, 1981
- 11) Takahara N, Saito S, Yoshida M et al: A case of amputation neuroma of the biliary tract with obstructive jaundice. Gastroenterol Jpn 16: 521-526, 1981
- 12) 小林謙之, 武藤邦彦, 東 宗徳ほか: 総胆管神経腫の1治験例, 胆と膵 5: 1323-1328, 1984
- 13) 佐藤太一郎, 七野滋彦, 秋田幸彦ほか: 胆摘後の断端神経腫—症例と本邦報告例について—, 外科 46: 533-536, 1984
- 14) 福永 純, 小坂 進, 古川 信ほか: 総胆管に発生した Amputation Neuroma の1例, 外科診療 30: 1349-1352, 1984
- 15) 奈良井省吾, 大塚為和, 佐藤康行ほか: 総胆管に生じた断端神経腫の1例, 日臨外医会誌 46: 1137-1142, 1985
- 16) Womack NA, Crider RL: The persistence of symptoms following cholecystectomy. Ann Surg 126: 31-55, 1946
- 17) Chu PT: Benign neoplasms of the extrahepatic biliary ducts. Arch Pathol 50: 84-97, 1950
- 18) Berge T, Häger K: Clinical significance of the amputation neuroma and length of the cystic duct remnant. Acta Chir Scand 133: 55-60, 1967
- 19) 正田裕一, 小暮洋暉, 堀川 知ほか: 胆道内視鏡によって発見された総胆管良性腫瘍の1例, 臨外 35: 1335-1339, 1980
- 20) Burhans R, Myers RT: Benign neoplasms of the extrahepatic biliary ducts. Am Surg 37: 161-166, 1971

A Case Report of Amputation Neuroma of the Common Hepatic Duct Following Cholecystectomy

Masaaki Yokota, Shuhei Iida, Nobuyuki Toshima, Ichiro Uyama and Keiji Torihama*
Department of Surgery and Internal Medicine*, Nerima General Hospital

Amputation neuroma is not a true neoplasm but an overgrowth at transected stumps of the autonomous nerve fibers. We have treated a patient with amputation neuroma which occurred in the common hepatic duct after cholecystectomy. A 63-year-old woman was hospitalized with complaints of epigastralgia and jaundice. She had undergone cholecystectomy eight years previously. Endoscopic retrograde cholangiopancreatography disclosed stenosis of the common hepatic duct with a smooth margin, and a common bile duct stone. On laparotomy, we found a tumor 7 mm in diameter covered with normal mucosa on the right wall of the common hepatic duct. Enucleation of the tumor and choledochotomy with T-tube insertion were carried out. Postoperatively the stenotic segment was dilated repeatedly with a balloon catheter, and improved. Histologic examination revealed that the submucosal tumor was an amputation neuroma due to the previous surgery. Amputation neuroma is one of the causes of obstructive jaundice after cholecystectomy, and awareness of this entity will lead to accurate diagnosis avoiding unnecessary extensive operations.

Reprint requests: Masaaki Yokota Department of Surgery, Nerima General Hospital
2-41-1 Asahiga-oka, Nerima-ku, Tokyo, 176 JAPAN