# 画像にて癌との鑑別が可能であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例

長崎大学医学部第2外科,同 救急部\*,本渡市酒井外科\*\*

正純 古井純一郎 塩竈 利昭 立川 降義 寺田 繁年 小原 敏文 松元 定次 松尾 則博 江藤 元島 幸一 角田 司 井沢 邦英\* 瀬川 徹

酒井 一守\*\*

黄色肉芽腫性胆囊炎(xanthogranulomatous cholecystitis)は胆囊癌との鑑別が困難とされているが、超音波検査ならびに computed tomography(CT)検査など画像診断にて鑑別が可能であった症例を経験したので報告する.症例は54歳女性.右季肋部痛の消腿後に,胆囊に腫瘍性病変を指摘されて来院した.超音波検査では胆嚢底部に全周性に壁肥厚を認め,胆嚢内腔は狭小化していた.肥厚した胆嚢壁内には結節性に hyperechoic lesion を認め,同部は造影 CT で low density area として描出された.また,胆嚢頸部には最大径約5cm の結石を認めた.血管造影では胆嚢動脈は拡張し,肥厚した胆嚢壁に沿って屈曲蛇行した細動脈の増生がみられたが,encasement は明らかでなかった.以上より,胆嚢癌を否定し,XGC の診断のもとに胆嚢摘出術を施行した.切除標本の胆嚢壁内には黄色の結節を認め,組織学的には同部に xanthoma cells,リンパ球および異物型巨細胞を認めた.

**Key words**: xanthogranulomatous cholecystitis, ultrasonography, computed tomography, carcinoma of the gallbladder

#### はじめに

黄色肉芽腫性胆囊炎(xanthogranulomatous cholecystitis,以下 XGC と略)は胆嚢癌との鑑別が困難な疾患で,術後の病理組織学的検索にて診断されることが少なくない $^{1/2}$ ,しかしながら,最近 XGC の報告例が増加し $^{37-51}$ , computed tomography (CT) 検査あるいは超音波検査など画像上の XGC に特徴的な所見が明らかになってくると,画像による術前診断も可能となってきた。最近,われわれは CT,超音波検査および血管造影所見などより,術前に XGC と診断した症例を経験したので報告する。

### 症 例

患者:54歳,女性. 主訴:右季肋部痛.

既往歴:9年前より高血圧にて降圧剤服用。

家族歴:特記すべきものなし.

現病歴:平成元年11月5日右季肋部痛が出現したため近医を受診した。超音波検査にて胆石および急性胆嚢炎と診断され、抗生剤の点滴治療を受け軽快した。 平成2年3月22日再度右季肋部痛が出現し、前記医院 を受診. 超音波検査にて胆嚢の腫瘍性病変と腫瘍マーカーで carbohydrate antigen 19-9(CA19-9)の高値 (341U/ml)を指摘され、精査目的にて当科に紹介された。

入院時現症:体格中等度,栄養良好,発熱なし,貧血,黄疸なし,腹部は平坦で圧痛なし,右季肋部の胆囊と思われる部位に腫瘤様抵抗を触知した。

入院時検査成績:白血球の増加とGOT, GPTの軽度上昇を認めた。腫瘍マーカーはフェリチン, CA19-9が軽度上昇していた(Table 1)。

腹部超音波検査:胆嚢頸部に最大径約5cmの結石 1個を認めた。底部では全周性に著明な壁肥厚が認め られ、胆嚢内腔は狭小化していた。肥厚した胆嚢壁内 に結節性に、音響陰影を伴わない hyperechoic lesion がみられた。肝との境界はほぼ明瞭であった(Fig. 1).

CT 検査: 胆囊壁は底部で限局性に肥厚し, 造影 CT では胆嚢壁内に enhance されない low density area (LDA) が認められた (**Fig. 2**),

逆行性胆管造影:胆嚢頸部に嵌頓した巨大な結石のため、胆嚢は十分に造影されなかった。総胆管は15mmと軽度の拡張がみられたが、肝内胆管に至るまで陰影欠損像は認めなかった(Fig. 3)。

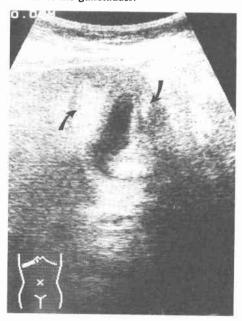
超音波ならびに CT 所見より XGC を疑ったが、胆 嚢癌との鑑別診断のため、腹部血管造影を行った。

<sup>&</sup>lt;1990年11月19日受理>別刷請求先:塩竈 利昭 〒852 長崎市坂本町7-1 長崎大学医学部第2外 科

Table 1 Laboratory findings on admission

WBC	10000/mm³ ↑	Ch-E	1.31 <b>⊿</b> pH/h
RBC	$453\!\times\!10^4/\text{mm}^3$	LDH	375 IU/1
Hb	13.8 g/dl	7-GTP	39 IU/1
Ht	41.3 %	LAP	77 IU/1
Plt.	$39.4\!\times\!10^4/mm^3$	TTT	2.7 kunkel
TP	7.3 g/dl	ZTT	8.5 kunkel
A/G	1.4	Amylase	153 IU/1
T-Bil	$0.5~\mathrm{mg/dl}$	CEA	0.4 ng/ml
D-Bil	$0.3\mathrm{mg/dl}$	CA19-9	48.4 U/ml ↑
GOT	45 IU/1↑	AFP	3.7 ng/ml
GPT	56 IU/l ↑	Ferritin	139 ng ml †
Al-p	215 IU/1	SPAN=1	15.1 U ml

**Fig. 1** Ultrasonography shows nodular hyperechoic lesions (arrows) at thickened wall of the fundus of the gallbladder.



腹部血管造影検査:胆囊動脈は軽度拡張し、肥厚した胆囊壁に沿って屈曲蛇行した細動脈の増生が認められた(Fig. 4)。肝動脈右前下区域枝末梢にも屈曲蛇行がみられ、実質層では肥厚した胆嚢壁および肝床部に境界不明瞭な斑状の stain が認められた。しかしながら、胆嚢動脈の encasement は明らかでなく、胆嚢癌を示唆する所見に乏しかった。

以上の検査結果より XGC と診断して, 5 月23日手 術を施行した。

手術所見:胆囊は腫大し,炎症所見が強く,十二指腸,結腸,大網が強固に癒着していた。癒着を剝離す

Fig. 2 Contrast enhanced computed tomography shows low density area (arrows) concordant with the distribution of hyperechoic lesions detected by US.



**Fig. 3** Endoscopic retrograde cholangiography shows a filling defect of the neck of the gallbladder, but scarce findings about the fundus of the gallbladder because of faint staining.



ると、胆嚢底部の壁は肥厚して固く触知され、肝床部の肝も同様に固く触れた。肝への炎症の波及が考えられ、同部は胆嚢との剝離が困難であったため、肝床部肝組織を一部含めて胆嚢摘出を行った。胆嚢摘出後、肥厚した胆嚢壁の術中迅速病理診断を行ったが悪性所

**Fig. 4** Angiography revealed expansion and tortuosity of the cystic artery in arterial phase (arrows).

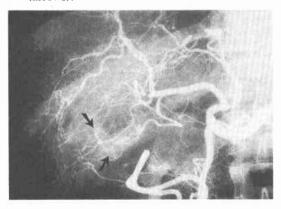
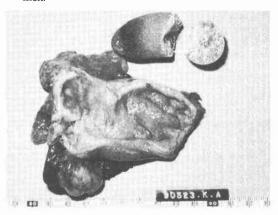


Fig. 5 Macroscopic findings of the resected specimen.



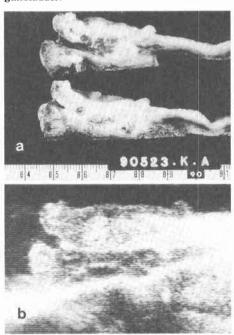
見は認められなかった。

切除標本肉眼所見:胆囊内腔面は底部で正常粘膜面の網目様構造は消失し、粗であったが、出血・壊死・潰瘍などの所見は認めなかった。胆嚢頸部には5.0×2.5×2.5cm大のコレステロール結石1個を認めた(Fig. 5)。割面では胆嚢底部の胆嚢壁は約1.5cmと肥厚し、壁内に黄色の結節を認めた(Fig. 6a)。

切除標本の水侵法超音波検査所見:胆嚢底部から体部にかけて、胆嚢壁内に結節性に hyperechoic lesionを認め (Fig. 6b), 割面標本での肉芽腫の分布に一致していた。

病理組織所見:胆嚢粘膜は正常で,異型腺管は認めなかった。胆嚢壁は肥厚し,漿膜下に xanthoma cell,リンパ球,異物型巨細胞よりなる肉芽腫を認め,XGCと診断した(Fig. 7a)。また,胆嚢底部で一部固有筋層が断裂し肉芽組織に置換されている所見が認められ

Fig. 6 a: The cut surface of the gallbladder shows nodules of xanthogranuloma located in the fundus of the gallbladder. b: Ultrasonography by immersion method shows nodular hyperechoic lesions concordant with the distribution of xanthogranuloma observed in the cut surface of the gallbladder.

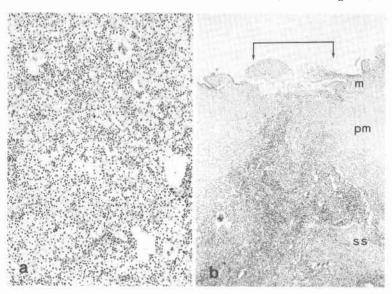


(Fig. 7b), 同部に深い潰瘍が存在したことが示唆された。 術中硬く触れた肝床部肝組織にはリンパ球を主体とする炎症細胞浸潤が認められた。

#### 老 窓

XGC は1948年 Weismann ららにより記載され、本邦では1975年嶋田らの報告が最初とされている。XGC は病変の進展形式、特異な組織像から悪性腫瘍との鑑別が困難なまれな疾患とされていたが、最近、本邦での XGC に対する認識が高まるにつれ報告例が増加し、決してまれな疾患ではなくなってきた。渋谷ららは41例の XGC の臨床病理学的検討から4型(formy histiocytes のみの浸潤・集合、xanthogranulomaの形成、xanthogranulomaに対する著しい異物性炎、線維化に大別し、その中で異物性炎の像が最も高頻度にみられたと報告した。XGC の組織像は主として好酸球とリンパ球の炎症性細胞浸潤に加えて線維芽細胞の増生と肉芽腫の形成を伴うといわれている。この組織像で、急性ないし慢性胆嚢炎のそれと比較して特異な点は肉芽腫の存在であることより、武藤らいは35例の肉芽腫

**Fig. 7** a: Microscopically, xanthoma cells mixed with lymphocytes and foreign body giant cells are observed (HE staining ×100). b: Proper muscular layer of the gallbladder was partly split and displaced by granulomatous tissues (↓ ↓ , HE staining ×40).



を形成した胆嚢炎症例を retrospective に検討し、その臨床像を次のように要約している.

- ① 入院(手術)1か月~6か月前に急性胆囊炎の発作を経験している。
- ② 入院時急性胆嚢炎の症状に乏しくて胆嚢を硬い腫瘤として触れる.
- ③ X線検査で胆嚢造影不可能であり、血管造影で 胆嚢癌と類似した像を呈する
  - ④ 手術時、胆嚢剝離が困難である
- ⑤ 結石は全例に存在しており, 胆嚢や総胆管に結石 嵌頓を伴う.
- ⑥ 肉眼的に胆嚢壁は著しく肥厚しており壁内に黄色~赤褐色で栗粒大~小豆大の肉芽腫性結節を散見する.
- ⑦ 組織学的に結節は組織球を主体とする炎症性肉芽腫性病変よりなっている。

本例は入院6か月前に右季肋部痛があり,胆石を伴う急性胆嚢炎と診断されていた。当科入院時は急性胆嚢炎の所見はなく,右季肋部に腫瘤様抵抗を触知した。逆行性胆管造影では頸部の巨大な結石のため胆嚢底部の病変は描出できなかった。 術中所見では胆嚢は肝床部よりの剝離が困難であったため,肝床部肝組織を一部含めて胆嚢摘出を行った。また,切除標本の肉眼所見,組織所見はともに武藤らの報告とよく一致した。

XGC の発生機序としては結石の嵌頓などによって、Rokitansky-Aschoff (RA) sinus から胆嚢壁内に胆汁が侵入し、これを組織球が貪食し、ついで、褐色色素を有する xanthoma cells よりなる肉芽腫が形成され、引き続いて異物性炎症、線維化へと進んで行くものと考えられているが、本例の組織像では、胆嚢底部で一部固有筋層が断裂し肉芽組織に置換されている所見が認められ、深い潰瘍の存在が示唆されたことから、6か月前の急性胆嚢炎発症時、胆嚢底部に潰瘍を形成し、胆汁が同病変部より壁内へ侵入して漿膜下に肉芽腫を形成、さらに肝床部肝組織にまで炎症が波及していったものと推定された。

急性胆嚢炎の発作から肉芽腫の形成までの期間に関して、Edlund ら<sup>11)</sup>は発作後3~4週目より肉芽腫が形成されると報告した。また、肉芽腫の組織像と時間的要素の関係では、経過が1か月以内の症例では白血球と混在する肉芽腫であり、1か月~6か月ではリンパ球、線維芽細胞を混在、それ以上の長時間例では組織球よりなるといわれている<sup>10)</sup>。本例の肉芽腫の組織像では白血球はごくわずかで、リンパ球が大多数を占め、一部線維芽細胞を混在しており、6か月の臨床経過に一致するものと考えられた。

XGC の超音波検査所見に関して、Bluth ら<sup>4</sup>は highly reflective mass, 宇田川ら<sup>5</sup>は "ギラギラ"とした

印象の hyper-reflective な所見をその特徴的所見と報告した。本例の切除標本の水侵法超音波検査でも hyperechoic に描出された部位と割面標本での xanthogranuloma の分布はよく一致し、これらは脂質に富んだ xanthogranuloma を正確に反映した所見であると考えられた。CT 所見に関して、Düber ら<sup>12)</sup>は胆囊の不整な壁肥厚と肝、十二指腸との境界が不明瞭な所見を報告した。本例では CT 上、肝との境界は比較的明瞭であり、肝床部肝組織への炎症の波及の程度によって所見は異なるものと考えられた。病変部の胆嚢壁は造影 CT では LDA として 描出され、xanthogranuloma の分布によく一致していた。

#### 文献

- 山根隆明,守 且孝,三隅厚信ほか:胆のう癌との 鑑別が困難であった慢性胆嚢炎の1例。胆と膵 5:1051-1055, 1984
- 山下裕一,星子 勝,黒肱敏彦ほか:悪性腫瘍との 鑑別が困難であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例。 日臨外会誌 47:923-926,1986
- 3) 山瀬博史, 三品佳也, 村上雅彦ほか:十二指腸乳頭 部癌に併存した黄色肉芽腫性胆嚢炎の 1 例. Gastroenterol Endosc 31: 953—960, 1989
- 4) Bluth EI, Katz MM, Merritt CRB et al: Echographic findings in xanthogranulomatous cholecystitis. J Clin Ultrasound 7:213—214,

1979

- 5) 宇田川晴司, 竹内和男, 渡辺五朗ほか:黄色肉芽腫 性胆嚢炎 (Xanthogranulomatous cholecystitis) の超音波像、第43回日本超音波医学会講演論文集 43:557—558, 1983
- 6) Weismann RE, McDonald JR: Cholecystitis. A study of intramural deposits of lipids in twenty-three selected cases. Arch Pathol 45: 639-657, 1948
- 7) 嶋田 紘, 洲崎兵一, 中村玄行ほか:胆嚢の良性隆 起性病変について。外科診療 17:1012-1018, 1975
- 8) 渋谷宏行,阿部章彦,恩村雄太:Xanthogranulomatous Cholecystitis-41例の臨床病理 学的検討,胆と膵 5:185-190,1984
- 9) Dowdy GS: The Biliary Tract. Lea & Febiger, Philadelphia, 1969, p111
- 10) 武藤良弘,内村正幸,脇 慎治ほか:胆嚢癌に類似 する胆嚢炎の臨床病理学的検討,日消外会誌 12:245-252,1979
- 11) Edlund Y, Olsson O: Acute cholecystitis; its aetiology and course, with special reference to the timing of cholecystectomy. Acta Chir Scand, 120: 479—494, 1961
- 12) Düber C, Störkel S, Wagner PK et al: Xanthogranulomatous cholecystitis mimicking carcinoma of the gallbladder: CT findings. J Comput Assist Tomogr 8: 1195-1198, 1984

## A Case of Xanthogranulomatous Cholecystitis Differentiated from Gallbllader Carcinoma by Imaging Diagnosis

Toshiaki Shiogama, Takayoshi Tachikawa, Masazumi Terada, Junichirou Furui, Shigetoshi Matsuo, Norihiro Kohara, Toshihumi Eto, Teiji Matsumoto, Tohru Segawa, Koichi Motojima, Tsukasa Tsunoda, Kunihide Izawa\*
and Kazumori Sakai\*\*

Second Department of Surgery and Emergency Department\*, Nagasaki University School of Medicine
Sakai Hospital\*\*

Xanthogranulomatous cholecystitis (XGC) is a disease which is difficult to differentiate from gallbladder carcinoma. We report a case of XGC diagnosed preoperatively by imaging diangosis. The patient was a 54-year-old woman, who was referred to our hospital because of suspicion of a gallbladder tumor subsequent to right upper abdominal pain. Abdominal ultrasonography (US) showed a thickened gallbladder wall with a nodular hyperechoic lesion and a giant stone as much as 5 cm in the major axis. Contrast-enhanced computed tomography (CE-CT) revealed a low density area in the gallbladder wall. Angiographic findings revealed expansion and tortuosity of the cystic artery, but no encasement. Cholecystectomy was performed under the diagnosis of XGC. The resected specimen contained yellow nodules, distributed in agreement with the US and CT findings, in the gallbladder wall. Histological examination of the specimen revealed xanthoma cells, lymphocytes, and foreign body giant cells, leading to the diagnosis of XGC.

Reprint requests: Toshiaki Shiogama Second Department of Surgery, Nagasaki University School of Medicine
7-1 Sakamoto, Nagasaki, 852 JAPAN

ouni, con jui in