

胆摘後2か月で発症した胆管断端神経腫の1例

甲南病院外科

藤野 泰宏 佐藤 美晴

神戸大学第1外科

齋藤 洋一

症例は67歳、女性。胆石症にて胆嚢摘出後2か月で黄疸を主訴として発症。経皮経肝胆道造影における中部胆管狭窄像および胆汁細胞診より胆管癌と診断され保存的加療を受けていた。その後全身状態の悪化や腫瘍の増大を認めなかったため、開腹術施行。胆嚢管合流部から下部胆管にかけて、弾性硬で表面不整な5×3cmの腫瘤を認め、臍頭十二指腸切除が施行された。組織学的には、胆管壁に肥大した神経腫が多数増生し断端神経腫を形成しており、胆嚢摘出後に生じた胆管断端神経腫と診断した。胆嚢摘出術2か月という極めて早期に閉塞性黄疸を主訴として発生し、胆管癌と鑑別困難であった胆管断端神経腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

Key words: amputation neuroma, obstructive jaundice

はじめに

胆道断端神経腫は1928年 Husseinoff¹⁾により初めて報告され、胆摘術などの手術により胆管周囲に分布する神経の損傷に伴って生じた、神経細胞および結合織の過剰再生である²⁾³⁾。

今回われわれは、胆嚢摘出術後2か月という早期に黄疸を主訴として発症し、胆管癌と鑑別困難であった胆管断端神経腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：67歳、女性。

主訴：黄疸。

家族歴・既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：1984年5月、他院にて胆石症で胆摘術施行。2か月後の1984年7月末より黄疸出現し、当院内科入院となった。

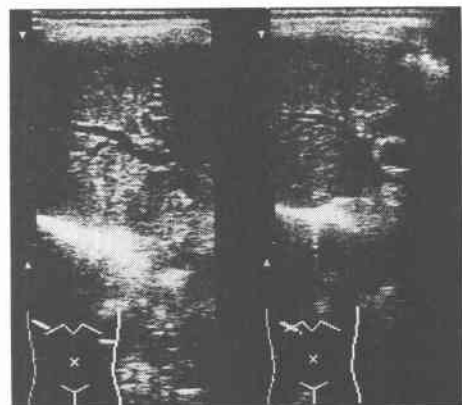
経過：総ビリルビン8.6mg/dl、直接ビリルビン5.3mg/dlと上昇し、腹部超音波検査にて胆管拡張を認めたため、経皮経肝胆管ドレナージ(percutaneous transhepatic cholangiodrainage: PTCD)施行した。胆管造影では総胆管中部で棍棒状に途絶し、3回施行された胆汁細胞診のうち1回にclass Vを認めたため胆管癌を疑われ、手術をすすめられたが、家族の強い希望

により保存的治療にて外来通院となった。しかしながら、全身状態の悪化や腫瘍の増大を認めず、手術目的にて1986年9月外科入院となった。

外科入院時現症：貧血、黄疸は認めず。腹部は平坦・軟で、肝・脾触知せず。右季肋部よりPTCD tube挿入中。

外科入院時検査所見：軽度の貧血を認めるが、ビリルビン値はT-Bil 0.9mg/dl、D-Bil 0.4mg/dlとPTCDにより改善(発症時T-Bil 8.6mg/dl、D-Bil 5.3

Fig. 1 At the onset abdominal ultrasonography showed the dilatation of the bile duct (a), but on admission the bile duct was not dilatated (b)

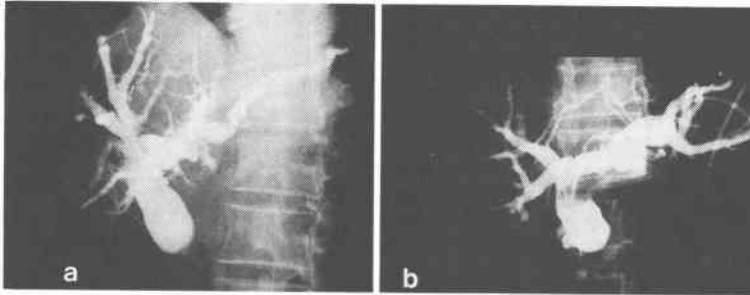


(a)

(b)

<1991年4月17日受理>別刷請求先：藤野 泰宏
〒650 神戸市中央区楠町7-5-2 神戸大学医学
部第1外科

Fig. 2 At the onset percutaneous transhepatic cholangiography showed the obstruction and dilatation of the bile duct (a), but on admission the dilatation was improved by PTCD (b)



mg/dl). 他に肝機能異常認めず. CA19-9は170ng/mlと軽度上昇していた.

腹部超音波検査: 黄疸発症時の腹部超音波では, 胆嚢窩に浸出液貯留を認め胆管著明に拡張していた (Fig. 1a) が, 今回入院時には, 胆管拡張は消失していた (Fig. 1b).

腹部 computed tomography (CT): 黄疸発症時の腹部 CT でも同様に, 胆嚢窩の浸出液貯留と胆管拡張

を認めた.

胆道造影: 黄疸発症時の胆道造影では総胆管は拡張し, 中部にて棍棒状に途絶していた (Fig. 2a) が, 今回入院時の胆道造影では胆管拡張は軽減していた (Fig. 2b). なお, 他院での胆摘時の術中胆道造影では, 狭窄所見や腫瘍像は認めなかった.

腹部血管造影: 今回入院時に施行した血管造影では, 動脈相にて膵内分枝の炎症性血管増生を軽度認めたが, encasement などの悪性を示す所見はなかった.

以上より胆管癌の疑いにて開腹術施行した.

手術所見: 胆嚢管合流部から下部胆管にかけて, 弾性硬で表面不整な5×3cmの腫瘍を認めたが, 脈管系や周囲臓器への浸潤はなく切除可能と判断し, 膵頭十二指腸切除術を施行した. 切除標本では遺残胆嚢管は3mmで, 腫瘍はその合流部から広がり, 下部胆管にまで至っていた (Fig. 3). また, 狭窄部の中枢側には6mmの黒色石を1個認めたが, 胆管粘膜に腫瘍像など

Fig. 3 The resected specimen showed the stenosis from the confluence to the lower common bile duct, but the tumor didn't revealed the mucosa

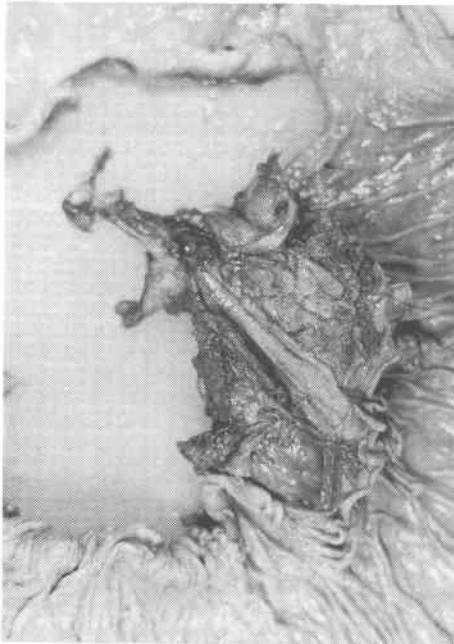
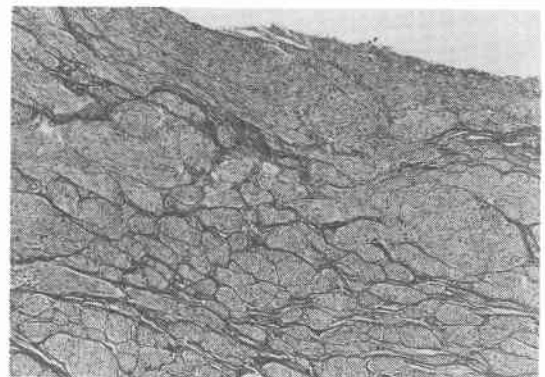


Fig. 4 Histological finding of the bile duct showed marked neuroma in the submucosa, HE., ×100



はみられなかった。

病理組織所見：胆嚢管合流部から下部胆管にかけて、胆管壁に肥大した神経腫が多数増生し、断端神経腫を形成していた(Fig. 4)。以上より、胆嚢摘出後に胆管壁に生じた胆管断端神経腫と診断した。

考 察

画像診断の進歩に伴い、胆道系疾患は増加しているものの、胆管良性腫瘍の報告は少ない。Marshall⁴⁾は、Mayo Clinicで行った20年間22,000例の胆道手術中、胆道癌49例に比べ良性腫瘍は4例であったと報告している。また、Burhansら⁵⁾は自験例4例を含め88例の胆管良性腫瘍を報告した。欧米の文献報告²⁾⁶⁾からみて、胆管良性腫瘍の頻度は悪性腫瘍の10%以下と思われ

る。一方、厳密な意味では真の腫瘍とはいえないものとして、胆道断端神経腫がある。切断された神経断端における神経細胞および結合織の過剰再生であり²⁾、胆道系においては、その大部分が胆摘術などの手術による胆管周囲に分布する神経の損傷に伴って生じるといわれている³⁾。

胆道断端神経腫は1928年 Husseinoff¹⁾により初めて報告され、本邦では1968年の市場ら⁷⁾の報告以来、1990年9月末までわれわれの拾遺した限りでは、自験例を含め27例⁷⁾⁻¹⁵⁾(Table 1)であった。

胆道手術例に対する発生頻度は、水本ら⁸⁾は0.38%と報告している。本邦27例の男女比は1.6:1、平均年齢は56.7歳(35歳~73歳)であった。原疾患は2例を

Table 1 Cases of Amputation Neuroma of biliary tract in Japan

No	Reporter	Age	Sex	Primary op.	after op. (years)	Symptom	Location Size(cm)	preoperative Dx.
1	Ichiba	35	F	cholecystectomy	4	rt. hypochondralgia	cystic duct 2.0	adhesion
2	Mizumoto	-	-	cholecystectomy	-	-	cystic duct -	-
3	Mizumoto	-	-	cholecystectomy	-	-	cystic duct -	-
4	Maki	58	M	cholecystectomy	8	epigastralgia	cystic duct adzuki-bean sized	stricture of bile duct
5	Abe	32	F	cholecystectomy	8	rt. hypochondralgia	cystic duct 0.8x0.5	cystic duct stump syndrome
6	Takeda	73	M	cholecystectomy	6	rt. hypochondralgia fever, jaundice	comm. hepatic duct 2.0x1.5	bile duct cancer
7	Konishi	54	M	cholecystectomy	19	epigastralgia	confluence 1.5x1.5x0.7	bile duct cancer
8	Watanabe	54	M	cholecystectomy +choledochotomy	16	epigastralgia fever, jaundice	hilar bile duct 0.7x0.7	hilar tumor
9	Shimizu	59	M	cholecystectomy	18	jaundice	confluence 1.0	hilar tumor
10	Nishimura	-	-	cholecystectomy	19	-	cystic duct -	-
11	Hori	-	-	cholecystectomy	-	-	-	-
12	Uchimura	50	F	cholecystectomy	7	rt. upper abd. pain	cystic duct little finger's head sized	stricture of bile duct
13	Uchimura	52	M	cholecystectomy	21	upper abd. pain	confluence -	amputation neuroma
14	Miyazono	67	F	subtotal gastrectomy	6	jaundice	confluence soybean sized	LN metastasis by gastric cancer
15	Furukawa	62	M	cholecystectomy +choledocholithotomy	6	upper abd. discomfort	comm. hepatic duct 2.0x2.0	stricture of bile duct
16	Takahara	62	M	cholecystectomy	19	jaundice	comm. hepatic duct 3.0	LN metastasis by gastric cancer
17	Tamaki	60	M	cholecystectomy	20	upper abd. pain jaundice	comm. bile duct 1.0	stricture of bile duct
18	Satoh	53	F	cholecystectomy	11	epigastralgia	cystic duct 2.0x1.0	cystic duct stone
19	Fukunaga	63	F	cholecystectomy choledocholithotomy	18	upper abd. discomfort jaundice	comm. bile duct -	stricture of bile duct choledocholithiasis
20	Kobayashi	67	M	cholecystectomy +choledochotomy	7	jaundice, fever	comm. bile duct 2.5x1.5	benign tumor
21	Narai	53	F	cholecystectomy +choledochotomy	17	rt. hypochondralgia epigastralgia	comm. bile duct 1.2x0.7x0.8	benign tumor
22	Ichiba	46	M	cholecystectomy	23	rt. hypochondralgia	comm. bile duct 2.0x1.5x1.5	bile duct cancer
23	Sano	58	M	unsuccessful cholecystectomy	20	no symptom	gall bladder 0.5x0.8	choledocholithiasis
24	Hirokawa	61	F	no operation	-	anorexia epigastralgia	gall bladder 3.5x2.5	cholecystoduodenal fistula, cholelithiasis
25	Iwasa	57	M	cholecystectomy	20	jaundice	comm. bile duct 1.0x1.0	bile duct cancer
26	Takahata	60	M	gastrectomy	20	nausea anorexia	comm. bile duct 0.7x0.3x0.2	stricture of bile duct
27	Auther	67	F	cholecystectomy	2	jaundice	comm. bile duct 5.0x3.0	bile duct cancer

除き胆石症あるいは胆嚢炎であったが、宮園⁹⁾、高畑¹⁵⁾は胃切除術に発生した胆管断端神経腫を報告しており、肝十二指腸間膜の損傷などをその原因としている。発生部位別でみると、遺残胆嚢管由来と考えられるのは8例で、全例疼痛にて発症していた。胆管壁由来と考えられるのは15例、そのうち10例に黄疸を認めた。また、胆嚢より発生したのも2例にみられた¹²⁾¹³⁾。また、初回手術から再手術までの期間は、平均14.4年(2年~23年)であった。胆摘後に生じた断端神経腫では、手術後数か月で術前と同様の疼痛発作を来す例が多いとの報告¹⁶⁾もあり、疼痛発生時期に神経腫が発生しているとは限らないものの、従来は胆摘後症候群とされていたものの中には断端神経腫が含まれていると思われた。また、Chu²⁾は、胆管に発生した場合には、神経腫が直径1cm以上になって閉塞性黄疸を起こしうると述べている。本邦の黄疸例では、初回手術から再手術までの平均年数は13.3年(2年~20年)であり、一般に緩徐な発育をとると考えられていた¹¹⁾。しかし、本症例は手術後2か月という早期に閉塞性黄疸が発生したことから、胆摘後に急速に増大したと考えられ、極めてまれな例といえた。

術前診断をみると、術前より断端神経腫と診断されたものはほとんどなく、遺残胆嚢管症候群や胆管癌などと診断されていた。特に黄疸を主訴とした10例では、自験例も含めて5例で胆管癌が疑われた。総胆管に発生したものでは炎症を合併して不整な胆管狭窄像を示す例もあるとの報告¹⁷⁾もあり、悪性腫瘍と鑑別が困難であることをうかがわせた。

胆摘後の黄疸の原因としては、胆管断端神経腫も念頭に置き、経皮経肝胆道鏡などで術前診断能を向上させ、より適切な手術を選択することが必要である。その際、断端神経腫は神経繊維切断後の治癒機転に際して生じるものである²⁾ことから、新たな胆道切除や再建が新しい神経腫を生み出す恐れもかんがみて、十分注意して手術を施行せねばならない。

稿を終えるにあたり、病理組織診断につきご指導頂きました神戸大学病理部岡田 聡博士に深謝致します。また本論文の要旨は第141回近畿外科学会で発表した。

文 献

- 1) Husseinoff D: Ueber einen Fall von Wucherung des Nervengewebes nach wiederholten

operation der Gallengänge. Zentbl Pathol 43: 344-348, 1928

- 2) Chu PT: Benign neoplasms of the extrahepatic biliary ducts. Arch Pathol 50: 84-97, 1950
- 3) Stembridge VA: Amputation Neuroma following cholecystectomy. Ann Surg 34: 1048-1051, 1951
- 4) Marshall JM: Tumor of bile duct. Surg Gynecol Obstet 54: 6-12, 1932
- 5) Burhans R, Myers RT: Benign neoplasms of the extrahepatic biliary ducts. Am Surg 37: 161-166, 1972
- 6) Moore SW: Benign tumors of the biliary tract. JAMA 150: 990-1002, 1952
- 7) Ichiba S, Ikeda M: Erfolgreich operation bei einem amputationsneurom des gallenweges. Yonago Acta Med 12: 213-216, 1968
- 8) 水本龍二, 永末良夫, 本庄一夫: 胆道の再手術—良性胆道狭窄を中心として—. 手術 12: 1197-1203, 1972
- 9) 宮園 光, 秋山 洋, 竹内和夫ほか: 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
- 10) 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
- 11) 小林謙之, 武藤邦彦, 東 宗徳ほか: 総胆管神経腫の1例. 胆と膵 5: 1323-1328, 1984
- 12) Sano T, Hirose T, Kagawa N et al: Polypoid traumatic neuroma of the gallbladder. Arch Pathol Lab Med 109: 574-576, 1985
- 13) Hirokawa m, Morita T, Manabe T et al: Traumatic neuroma of the gallbladder—Report of case. Kawasaki Med J 3: 143-150, 1985
- 14) 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. 胆と膵 9: 225-232, 1988
- 15) 高畑一郎, 岩上 榮, 広瀬宏一ほか: 胃切除後に発生した総胆管断端神経腫の治験例. 胆と膵 10: 97-101, 1989
- 16) Hume RH, Buxton R: Postcholecystectomy amputation neuroma. Am Surg 20: 698-708, 1954
- 17) Cattell RB, Ville JS: Amputation neuromas of the biliary tract. Arch Surg 83: 242-246, 1961

**A Case Report of Amputation Neuroma of the Common Bile Duct
Occured Two Months after Cholecystectomy**

Yasuhiro Fujino and Yoshiharu Satoh
Department of Surgery, Kohnan Hospital
Yoichi Saitoh

First Department of Surgery, Kobe University School of Medicine

A 67-year-old woman complained of jaundiced two months after cholecystectomy. She was diagnosed as having cancer of the common bile duct because percutaneous transhepatic cholangiography revealed stenosis of the middle bile duct and cytological evaluation of the bile was class V. She had been treated conservatively. Then she was re-hospitalized because her general condition did not get worse, and pancreatoduodenectomy was performed. On laparotomy, we found an elastic-hard 5×3 cm tumor spreading from the confluence to the lower common bile duct. Histological examination revealed an amputation neuroma in the wall of the bile duct as a result of the cholecystectomy. In this case obstructive jaundice occurred at an earlier stage after the primary operation than in other reported cases of amputation neuroma of the bile duct.

Reprint requests: Yasuhiro Fujino First Department of Surgery, Kobe University, School of Medicine
7-5-2 Kusunoki-cho, Chuo-ku, Kobe, 650 JAPAN
