

右副腎からの著明な側副栄養血管を認めた 末梢型胆管細胞癌の1切除例

大阪府立成人病センター外科, *現 済生会江津総合病院外科, **鳥取赤十字病院外科

川角 博規* 佐々木 洋 今岡 真義 榊谷 誠三
大橋 一朗 小川 淳宏 岩本 伸一 石川 治
古河 洋 岩永 剛 工藤 浩史**

最近, われわれは, 右側腹部腫瘍に対し各種画像診断を試みたが, 術前確定診断をつけるのが極めて困難であった末梢型胆管細胞癌の症例を経験したので報告する. 症例は59歳の男性で体重減少を主訴として近医を受診し, computed tomography (CT) で腹部腫瘍を指摘され紹介となった. 腹部 CT および magnetic resonance image では肝右葉後区域から右副腎におよぶ浸潤性発育を示す腫瘍が描出された. 血管造影上, 腫瘍は hypervascular で強い腫瘍濃染を示し, 肝動脈造影では arterio-portal shunt がみられるが encasement や stretching は認められなかったため, 胆管細胞癌よりもむしろ右副腎癌の肝浸潤の術前診断のもとに手術を行った. 病理組織学的にはムチン産生と中等度結合織を伴う管状腺癌から成る胆管細胞癌であり, 豊富な腫瘍血管の増生のため血管造影で特異な像を呈したものとされた.

Key words: peripheral type of intrahepatic bile duct carcinoma, hypervascular cholangiocellular carcinoma with arterio-portal shunts, right adrenal invasion

はじめに

胆管細胞癌は一般に血管造影上, 肝内動脈の腫瘍による侵蝕, 圧排, 閉塞像が主体であるといわれている¹⁾. 最近, われわれは, 右副腎動脈および肝動脈右後区域枝の両者より支配を受け, 著明な腫瘍血管増生, 腫瘍濃染を認め, さらに肝動脈造影にて arterio-portal (A-P) shunt を示したことから, 右副腎癌の肝浸潤の術前診断のもとに切除したが, 組織学的に末梢型胆管細胞癌であったまれな症例を経験したので報告する.

症 例

症例: 59歳, 男性.

主訴: 体重減少.

家族歴: 特記すべきことなし.

既往歴: 高血圧, 心疾患, 糖尿病など特記すべきことなし.

現病歴: 1990年1月頃から体重減少を認めたため精査目的で近医に入院し, computed tomography (CT)

および血管造影所見より右副腎癌の肝後区域および下大静脈への浸潤が疑われ, 5月1日手術目的で当センター外科入院となった.

入院時現症: 身長162cm, 体重70kg, 体温36.0℃, 血圧100/70mmHg, 脈拍76/分, 整で貧血黄疸はなく, 胸腹部理学的所見に異常はみられなかった. また副腎疾患に特有の症状は認められなかった.

入院時検査成績: 白血球の軽度増多と尿中17-OHCSの軽度上昇を認める以外肝機能および腫瘍マーカーには異常はみられなかった (Table 1).

腹部 CT 検査: 単純 CT で右腎上極から肝後区域にかけて9×8cm 大の腫瘍を認め下大静脈は後方より圧排されていた. 腫瘍は造影 CT で enhance されたが中央部はやや low density を呈した. 右副腎は同定されず, 肝腫瘍の下方への進展の可能性も考えられた (Fig. 1, 2).

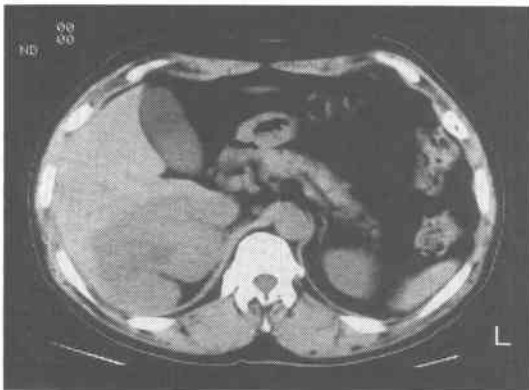
腹部 magnetic resonance image (MRI) 検査: T₂ 強調矢状断面像では, 頭側は肝後区域と不鮮明な境界を示し浸潤性発育が疑われる高信号腫瘍として描出され, 尾側は右腎と接しているが, 境界は比較的鮮明であった (Fig. 3).

<1991年4月17日受理>別刷請求先: 川角 博規
〒695 江津市江津町1551番地 島根県済生会江津総合病院外科

Table 1 laboratory findings on admission

RBC	418 × 10 ⁴ /mm ³	Na	139 mEq/L
WBC	10940 /mm ³	K	4.1 mEq/L
Hb	13.0 g/dl	Cl	104 mEq/L
Ht	40.0 %	ICG ₁₅	12.3 %
Plat	19.4 × 10 ⁴ /mm ³	PT	103 %
TP	6.7 g/dl	alpha-fetoprotein	20 > ng/ml
Alb	4.4 g/dl	carcino-embryonic antigen	1.0 > ng/ml
Chol	223 mg/dl	carbohydrate antigen 19-9	6 U/ml
T-Bil	0.5 mg/dl	urine	
GOT	18 U/L	17-KS	4.6 mg/day (3~15)
GPT	21 U/L	17-OHCS	9.4 mg/day (3~9)
ALP	56 U/L	vanillyl mandelic acid	3.8 mg/day (1.5~7.5)
γ-GTP	54 U/L		
FBS	73 mg/dl		
BUN	18 mg/dl		
Creat	1.2 mg/dl		

Fig. 1 Plain CT scan demonstrated a single, low-attenuation mass with irregular borders in the posterior segment of the liver. No dilatation of intrahepatic duct and calcification were depicted.



腹部血管造影所見：総肝動脈造影では、動脈相において、右肝動脈の拡張を示し、その末梢に強い腫瘍血管の増生を伴う辺縁不整で濃淡不均一な腫瘍濃染像が得られたが肝細胞癌によくみられる translucent rim は認められなかった (Fig. 4)。毛細血管相では、A-P shunt がみられたが、肝内転移巣を思わせる濃染像は描出されなかった (Fig. 5)。腫瘍には右上下副腎動脈からの著明な栄養血管像もみられた (Fig. 6)。

以上の画像診断より原発性肝癌も疑われたが、右副腎動脈からの著明な栄養血管がみられたことより、右副腎癌の肝後区域浸潤と診断し、5月29日手術を施行した。

手術所見：開腹すると、肝後区域から右腎上極を占

Fig. 2 On enhanced CT, only the periphery of the mass was enhanced.

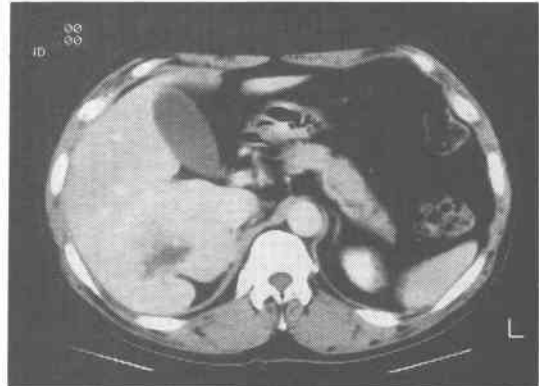


Fig. 3 On T₂-weighted MR image (sagittal section, TR=2.0sec, TE=22msec), the tumor was demonstrated more intense than normal liver and extended to the right suprarenal region (open arrow). H: liver, K: right kidney, T: tumor



める手拳大の硬い腫瘍が認められ、下大静脈および腎と強く癒着するも剥離は可能であり、胆嚢摘出後肝右葉切除、右副腎合併切除を施行した。

摘出標本所見：切除標本は重さ940gで腫瘍の大きさは13×7×7cmであり、固定標本の剖面像では内部は不均一で境界不鮮明な塊状型の腫瘍であった (Fig. 7)。原発性肝癌取扱い規約²⁾によると、Ig, Fc (-),

Fig. 4 On hepatic angiogram (arterial phase), the right hepatic artery was dilated and many thin neoplastic vessels were noted. No encasement and stretching of the right hepatic artery were seen.

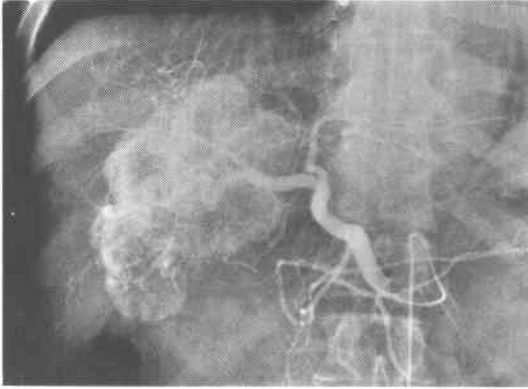


Fig. 5 On hepatic angiogram (capillary phase), a large tumor stain and arterio-portal shunt formation (black solid arrow) were revealed.

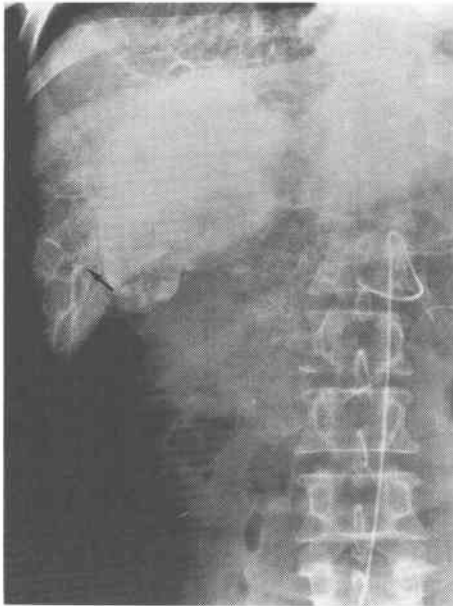


Fig. 6 The tumor was also fed by the right superior and inferior suprarenal arteries with hyper-vascular patterns.

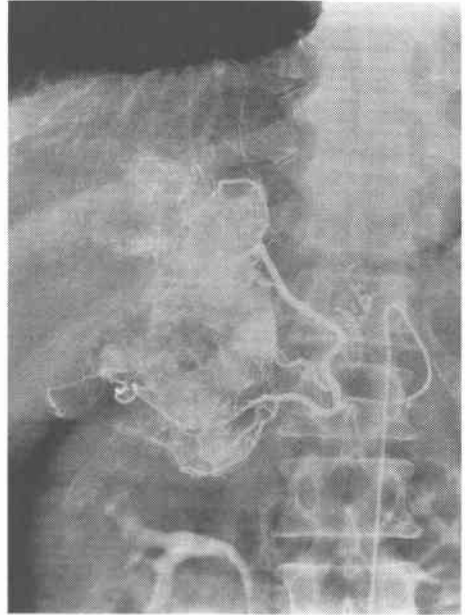
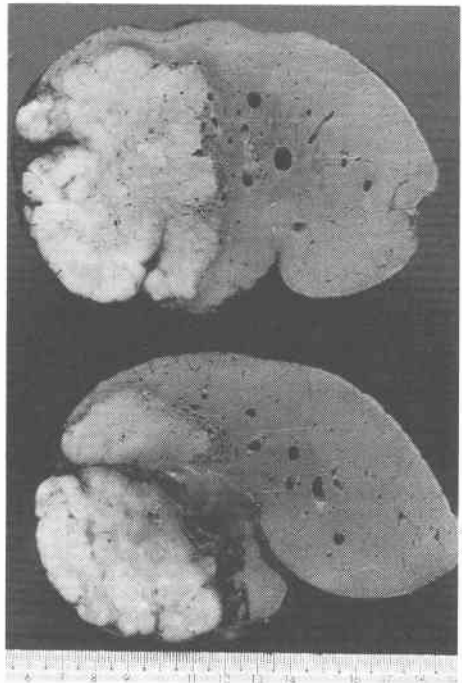


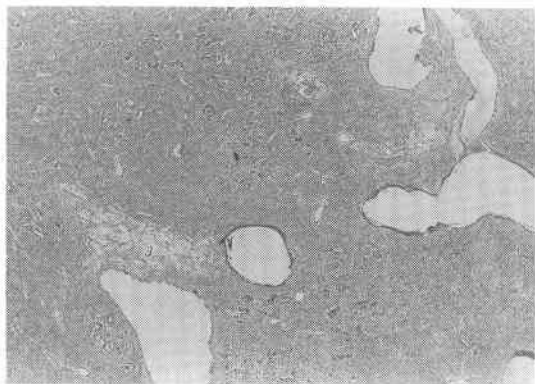
Fig. 7 Photograph of gross specimens (cut surface) demonstrated the exophytic tumor extending to the right adrenal gland.



Sf(-), S₂ (右副腎), N(-), Vp₀, B₁, IM₀, P₀, TW(-), Z₀であり、肉眼的進行程度はT₄, N₀, M₁, 手術はHr₂(P, A), 右副腎摘出術, R₃, Stage IV-B, 相対的非治癒切除であった。

病理組織学的所見：主組織型は管状腺癌で一部に乳頭状腺癌もみられた。腫瘍血管が良く発達した間質結

Fig. 8 Photomicrograph showed that tumor was mainly consisted of mesotubular adenocarcinoma with mucin secretion areas, accompanied by moderate fibrosis and many tumor vessels. Venous invasion and lymph vessel involvement were not revealed. (H.E stain, $\times 20$)



合織には粘液産生もみられたが脈管侵襲、リンパ管侵襲は認められなかった(**Fig. 8**)。病理組織学的には副腎へ直接浸潤した末梢型胆管細胞癌と診断された。

術後経過は良好で、術後36日目退院となり、1990年11月6日現在再発の兆候はみられない。

考 察

1988年原発性肝癌に関する追跡調査³⁾によると、組織診断の確定した2,514例のうち肝細胞癌2,300例、91.5%に対し、胆管細胞癌は138例、5.5%の頻度であり、胆管細胞癌の治癒切除率(41.7%)は肝細胞癌のそれ(57.8%)に比べ低く、肝硬変合併が少ないにもかかわらず予後は不良であると報告されている。

胆管細胞癌は1977年 Okuda ら⁴⁾により剖検例をもとに肝門型と末梢型に分類されているが、末梢型胆管細胞癌は肝門型に比べ silent stage が長く症状発現時には腫瘍が増大傾向にあるにもかかわらず、画像診断の進歩した現在でも術前確定診断率はいまだ低いのが現状である。

末梢型胆管細胞癌の各種画像診断のなかで CT および MRI 像での際立った特徴は得られない。単純 CT では、70~100%に腫瘍形成を認めるが、孤立性の境界不鮮明な低吸収域の腫瘍として描出されることが多く、肝内胆管の拡張や腫瘍内部の結節様構造が随伴所見としてみられることもあり、肝細胞癌に認められる肝硬変や被膜、モザイク像は通常みられない⁵⁾。造影 CT の効果は様々で特徴は見いだせず、他の腫瘍との

鑑別は困難である。

肝腫瘍を質的診断する上で MRI は有用であるが、末梢型胆管細胞癌における MRI の特徴は、Dooms ら⁶⁾によると、質的診断よりむしろ周囲組織への浸潤程度、血管侵襲、リンパ節転移あるいは肝内転移の有無において CT より有用であると述べている。自験例においては、CT, MRI とともに腫瘍として描出されているものの肝内胆管の拡張像はなく、肝細胞癌、副腎癌との質的鑑別は困難であった。

肝腫瘍を確定診断する上で血管造影は依然として重要な検査法で、診断価値は高いと言われている。一般に、肝内胆管癌の血管造影所見の特徴は arterial encasement, stretching が主体で、腫瘍の vascularity は肝細胞癌に比べ低く腫瘍血管の性状もより微細で pooling 像はみられないと報告されている⁹⁾。木戸ら¹⁾の肝内胆管癌15例の血管造影の検討においても血管増生が8例、53%に描出され、うち4例、50%に血管拡張が認められたが、その程度は肝細胞癌にみられるような著明なものではなく、むしろ管腔の広狭不整、硬化、狭窄、断裂、閉塞などの腫瘍血管としての特徴であり動静脈(門脈、肝静脈)短絡はみられなかったと述べている。1988年の肝癌研究会の追跡調査では hypervascular を呈する胆管細胞癌は43.7%と比較的高頻度であるが³⁾、その vascularity は肝細胞癌に比べ軽度であり、いずれの報告においても動静脈短絡形成は認められないのが特徴的である¹⁵⁾⁷⁾。このため、巨大な腫瘍血管を有した動静脈短絡を認める肝腫瘍は典型的な肝細胞癌を考えるべきか、肝内胆管癌よりむしろカルチノイド、腎癌、膵島細胞癌、平滑筋肉腫、絨毛癌、甲状腺癌または一部の胃癌、結腸癌などの多血性肝転移を疑うべきであるといわれている⁸⁾。

自験例の血管造影では、肝後区域から右副腎に至る腫瘍を肝動脈と副腎動脈が広範囲に栄養し、腫瘍血管は豊富で不均一な腫瘍濃染と A-P shunt を認めたが、encasement, stretching はみられなかった。また肝細胞癌にみられるような腫瘍を囲むように蛇行しながら腫瘍の中心に向かう形態や被膜形成も描出されず右副腎動脈からの栄養支配が著明であったことからむしろ右副腎癌の肝浸潤と考えた。末梢型胆管細胞癌の中には栄養動脈の拡張、圧排を伴った比較的 hypervascular な像を呈するものは報告されているが、動静脈短絡を伴った末梢型胆管細胞癌は極めてまれであるといえる⁹⁾。

水本ら¹⁰⁾は肝内胆管癌の血管像と組織所見、進展様

式および肉眼型を対比させ、肝内胆管癌12例中、乳頭腺癌3例はいずれも hypervascular でありしかも被膜を有した膨張性発育を示す結節型であるのに対し、管状腺癌の9例のうち6例は hypovascular を呈し、浸潤性発育を示す塊状型であったと報告している。自験例は、管状腺癌より成る塊状型の hypervascular mass であり、水本らの報告とは異なるが腫瘍濃染像を反映する病理学的所見として腫瘍内の豊富な血管像が認められた。

文 献

- 1) 木戸長一郎, 守 亮三: 原発性肝癌の血管造影. 胃と腸 11: 1591-1603, 1976
- 2) 日本肝癌研究会編: 原発性肝癌取扱い規約. 第2版. 金原出版, 東京, 1987
- 3) 日本肝癌研究会編: 原発性肝癌に関する追跡調査—第8報—. 肝臓 29: 1619-1626, 1988
- 4) Okuda K, Kubo Y, Okazaki N et al: Clinical aspects of intrahepatic bile duct carcinoma

- including hilar carcinoma. Cancer 39: 232-246, 1977
- 5) 大野康治, 井沢邦英, 押淵 徹ほか: 肝内胆管癌の臨床的研究. 日消外会誌 20: 1710-1717, 1987
 - 6) Dooms GC, Kerlan RK, Hricak H et al: Cholangiocarcinoma: Imaging by MR. Radiology 159: 89-94, 1986
 - 7) 田中正俊, 真島康雄, 谷川久一: 末梢型胆管細胞癌とその他の限局性病変. 肝・胆・膵 17: 51-58, 1988
 - 8) 大野浩司, 山下正人, 秋本昌一ほか: 肝細胞癌の血管造影. 臨画像 6: 45-57, 1990
 - 9) 大野浩司, 山下正人, 一島茂樹ほか: 腫瘍濃染, A-P shunt を示し原発性肝癌と鑑別困難であった末梢型肝内胆管癌の1例. 画像診断 10: 99-102, 1990
 - 10) 水本龍二, 佐々木英人: 胆管細胞性肝癌および稀な限局性肝疾患. 肝・胆・膵 10: 423-432, 1985

A Case of Hypervascular Cholangiocellular Carcinoma with an Arterio-portal Shunt and Dual Supply of the Hepatic and the Suprarenal Artery

Hiroki Kawasumi*, Yo Sasaki, Shingi Imaoka, Seizo Masutani, Ichiro Ohashi, Atsuhiko Ogawa, Shinichi Iwamoto, Osamu Ishikawa, Hiroshi Furukawa, Takeshi Iwanaga and Hiroshi Kudo**

*Department of Surgery, Gotsu Saiseikai Hospital

Department of Surgery, The Center for Adult Diseases, Osaka

**Department of Surgery, Tottori Red Cross Hospital

Recently we experienced a case of hypervascular cholangiocellular carcinoma with an arterio-portal shunt and dual supply of the hepatic and the suprarenal artery. A 59-year-old man, in whom a large exophytic tumor in the posterior segment of the liver was pointed out in another hospital, was admitted to our center for surgery. Abdominal CT and MR images revealed a large ill-defined tumor in the posterior segment of the liver extending to the right suprarenal region. Angiography showed a markedly hypervascular tumor with an arterio-portal shunt which was fed by both the hepatic and suprarenal arteries. Right hepatectomy and adrenalectomy were carried out under the diagnosis of adrenal cancer involving the liver. Histologically, the tumor was found to be a cholangiocellular carcinoma invading the right adrenal gland. The tumor consisted mainly of tubular adenocarcinoma with mucin-secreting areas accompanied by moderate fibrosis and many tumor vessels. These histologic patterns seemed to reflect the angiographic findings.

Reprint requests: Hiroki Kawasumi Department of Surgery, Gotsu Saiseikai Hospital
1550 Gotsu-cho, Gotsu, 695 JAPAN