

## 先天性胆管拡張症に合併した早期胆管癌の1例

旭中央病院外科, 帝京大学市原病院病理\*

田中 信孝 登 政和 柚本 俊一 森 潔  
出口 順夫 岡本 宏之 松本 順 中島 透\*

いわゆる早期胆管癌を合併した先天性胆道拡張症(CBD)の1例を経験した。症例は57歳, 女性で上腹部痛を主訴として来院。10年来, 当院内科にて膵管胆管合流異常を伴う総胆管嚢腫の診断のもと経過観察していたが, 腹部超音波検査, 逆行性膵管胆管造影などで嚢腫内に腫瘤陰影を認めたため, 総胆管癌を合併せる CBD の診断のもと手術施行した。術中診断では腫瘤を認めず, 迅速病理検査でも良性と判断されたため, 嚢腫切除にとどめた。切除標本の病理組織検査では fm までの浸潤を示す高分化型管状腺癌の微小病変を2か所に認めた。患者は術後1年2か月の現在再発の徴候なく健在である。本邦での早期胆管癌合併 CBD 手術例の報告は本例を含めいまだ24例であるが, 症例をさらに積み重ね長期予後を検討することで, 適切な術式の選択が可能となるものと考えられた。

**Key words:** early bile duct cancer, congenital bile duct dilatation, maljunction of the pancreatobiliary system

### はじめに

先天性総胆管拡張症(以下, CBD)は高率に癌を合併することが知られており, その外科的治療に際しては術式の選択に注意を要する。最近, 示唆に富むと思われるいわゆる早期胆管癌を合併する CBD<sup>2)</sup>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

症例: 57歳, 女性。

主訴: 上腹部痛。

家族歴: 父は Weil 氏病, 母は肝疾患にて死亡。

既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1971年上腹部痛あり, 近医にて胆石症といわれていた。以後毎年1回腹痛発作をみていたが, 1981年当院内科にて総胆管嚢腫と診断される。その後も2, 3年に1度の痛みのため経過観察していたが, 1990年8月1日腹部超音波検査にて嚢腫内に腫瘤像を認めたため内科入院となった。

入院時現症: 体格中等度, 眼瞼結膜に貧血なく, 眼球結膜に黄疸なし。栄養状態良好。腹部平坦軟で圧痛なく, 肝, 脾, 腫瘤は触知していない。

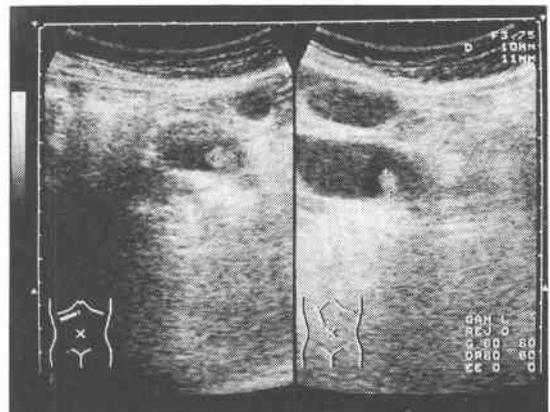
入院時検査成績: 血液生化学検査上, 特記すべき異

常なし。腫瘍マーカーである carcinoembryonic antigen (以下 CEA), carbohydrate antigen 19-9 (以下 CA19-9) はいずれも陰性であった。

腹部 ultrasonography (以下 US) 所見: 肝外胆管は肝門部より拡張し最大径25mmの紡錘形をなし, 下部胆管には径10mmほどの高エコーの突出をみている (Fig. 1)。

Endoscopic retrograde cholangiopancreatography (以下 ERCP) 所見: 膵管に胆管が合流せる膵胆管合流異常を認め, 拡張胆管下部には不整形, 境界明瞭

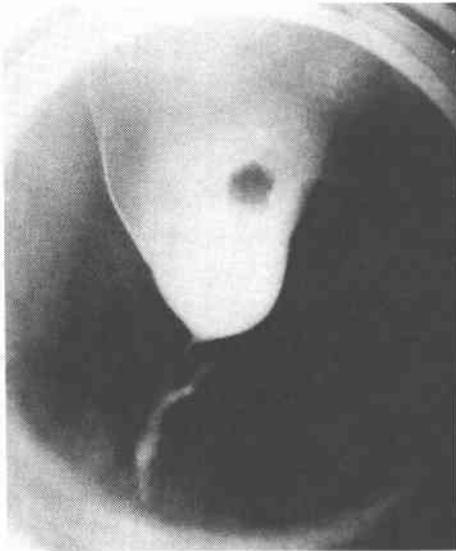
Fig. 1 Abdominal ultrasonography shows high echoic lesion in the dilated common bile duct.



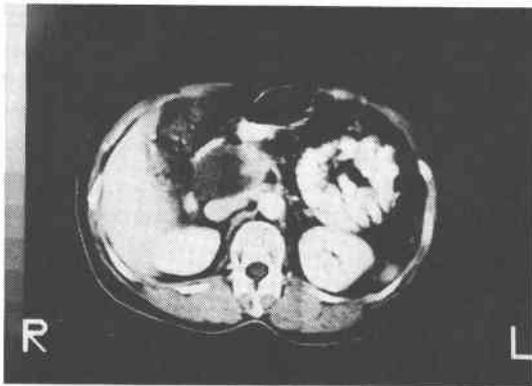
<1991年12月10日受理>別刷請求先: 田中 信孝

〒289-25 旭市イー1326 旭中央病院外科

**Fig. 2** Endoscopic retrograde cholangiopancreatography shows an irregular shaped filling defect in the cystically dilated common bile duct.



**Fig. 3** Abdominal computed tomography shows a protruding mass in the cyst wall.

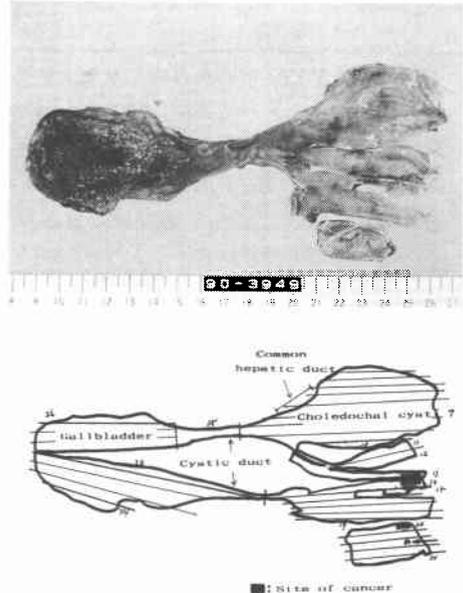


な透亮像を認めた (Fig. 2).

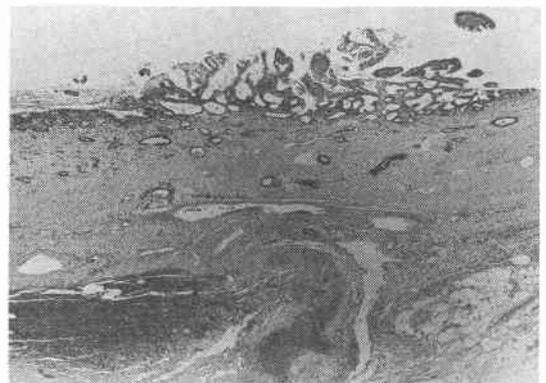
腹部 computed tomography (以下 CT) 所見：十二指腸を腹側に圧排する総胆管囊腫を認め、限局性的の内腔へ突出する腫瘤影の描出をみている (Fig. 3).

入院後経過：8月21日、上腹部痛、39℃の発熱を認め、血液検査にて白血球数 $22,000/\text{mm}^3$ 、CRP 12.1mg/dl、Glutamic oxaloacetic transaminase 1,900IU/l、Glutamic pyruvic transaminase 926IU/l、Lactic dehydrogenase 4,220IU/l、Alkaline phosphatase 490IU/l、総ビリルビン3.0mg/dl、血中 amylase 277U/l、

**Fig. 4** Resected specimen (upper). Tumor is not observed in the common bile duct cyst wall macroscopically. Scheme of the specimen (lower). Permanent section reveals existence of small foci of cancer. Large arrow indicates the orifice of suprajunctional narrow bile duct.



**Fig. 5** Microscopic finding shows well differentiated tubular adenocarcinoma invading fibromuscular layer (H.E.  $\times 10$ ).



尿中 amylase 4,540U/l と高値を示し、胆管閉塞機転と胆管炎、膵炎が疑われたため、経皮的に囊腫ドレナージ施行した。胆汁の細菌培養では Enterococcus (+) ~ (++) をみとめたが、細胞診は class 1 であった。胆汁中 amylase は 252,000IU/l、CA19-9 10,000U/ml 以上、elastase 15,000ng/dl 以上であった。胆管炎、膵

炎の軽快をみた後、9月14日外科に転科し、総胆管腫瘍を合併せるCBDの診断のもと9月18日手術施行した。

手術所見：上腹部正中切開で開腹。Kocherの授動を行いリンパ節12b<sub>2</sub>を迅速病理診に提出し転移陰性の返事をえたため、まずは嚢腫切除の方針とした。嚢腫をテーピングし、上方は総肝管で切離。下方は膵内まで追求し嚢腫下端近傍にてこれをいったん切離し、残存嚢腫端にて術中造影施行した。摘出標本には肉眼的

に腫瘤を認めず、また迅速病理診も悪性所見を認めなかったため、共通管直上の狭小部で残存嚢腫を追加切除した後、肝管空腸吻合(Roux en Y)施行し手術を終了した。

切除標本肉眼所見：総胆管は拡張し、9.5×8cm大の嚢腫を形成し、粘膜は発赤、びらんを伴い、一部に上皮の肥厚した部分をみるも腫瘤の存在を認めなかった(Fig. 4)。術中、凍結迅速切片にて癌陰性との返事をえていたが、術後切除標本の全割切片での組織学的

**Table 1** Early bile duct carcinoma associated with congenital biliary dilatation reported in Japanese literature

No.	Reporter	Age/Sex	C.C.	Previous op.	Todani's class.	Diagnosis of malignancy	Site of cancer	Op.	Histology and invasion	Prognosis
1.	Kasumi (1972) <sup>2)</sup>	50/F	Hypo.	None	I	(-)	Bms/BiAbc	PD	pap/fm	4 y, dead
2.	Meguro (1979)	48/M	r-hypo.	GB-x	IV <sub>A</sub>	ERCP	Bsm	Cy-x	pap/fm	2 y, dead
3.	Kashiwagi (1981) <sup>2)</sup>	42/F	r-hypo.	None	IV <sub>A</sub>	ERCP/AOG	Bm	PD	pap/fm	6 y 9 m, alive
4.	Furui (1982)	47/F	r-hypo.	Cy-stomy	I	(-)	Bm	Cy-x	tub/fm	1 y 9 m, dead
5.	Inudo (1982) <sup>2)</sup>	40/F	r-hypo.	None	IV <sub>A</sub>	ERCP	Bmi	PD	pap/m	7 y 5 m, aliye
6.	Takada (1982)	22/M	Hypo.	None	I	US/ERCP	Bi	PD	pap/m	6 y 3 m, alive
7.	Shimano (1983)	21/F	Fever	None	IV <sub>A</sub>	(-)	Bm	Cy-x	pap/fm	7 m, dead
8.	Nakaguchi (1983) <sup>2)</sup>	60/F	Ikterus	None	IV <sub>A</sub>	PTC	Bm	Cy-x	pap/m	
9.	Sasaki (1984) <sup>2)</sup>	45/F	Hypo.	None	IV <sub>A</sub>	ERCP	Bsm	Cy-x	pap/fm	3 y 11 m, alive
10.	Kumagai (1984)	48/M	r-hypo.	GB-x	IV <sub>A</sub>	ERCP	Bsm	Cy-x	pap/fm	
11.	Tanaka (1985) <sup>2)</sup>	34/F	Hypo.	Probe	IV <sub>A</sub>	US	Bm	Cy-x	tub/fm	4 y 6 m, alive
12.	Shiraishi (1986)	18/M	Epigas.	None	I	ERCP	Bm	Cy-x	as/m	2 y 10 m, alive
13.	Kikuchi (1986)	44/F	Ikterus	None	I	US/PTCS	Bm	Cy-x	tub/fm	2 y, alive
14.	Yamagiwa (1986) <sup>4)</sup>	48/F	Hypo.	None	I	(-)	Bm	Cy-x	tub/m	
15.	Yamase (1986) <sup>2)</sup>	54/F	Ikterus	None	IV <sub>A</sub>	PTCS/CT	Bims	PD	pap/fm	1 y 10 m, alive
16.	Oono (1987)	21/M	Hypo.	None	I	US/ERCP	Bi	PD	pap/m	5 y 6 m, alive
17.	Hashimoto (1987) <sup>6)</sup>	52/M	Hypo.	None	I	(-)	Bm	Cy-x	tub/m	
18.	Hashimura (1988) <sup>7)</sup>	59/M	Hypo.	None	IV <sub>A</sub>	(-)	Bl	Cy-x	tub/fm	5 m, alive
19.	Tsuchie (1989) <sup>8)</sup>	45/M	Hypo.	GB-x	I	ERCP	Bm	Cy-x	pap/m	
20.	Sato (1990) <sup>9)</sup>	48/F	r-hypo.	None	I	US/CT/ERCP	Bs	PD	tub/fm	
21.	Okudaira (1990) <sup>10)</sup>	60/F	Hypo.	None	IV <sub>A</sub>	US/ERCP	Bmi	PD	pap/fm	2 y 6 m, alive
22.	Okayama (1991) <sup>11)</sup>	79/F	r-hypo.	None	I	(-)	Bs	Cy-x	pap/m	
23.	Ko (1991) <sup>12)</sup>	35/M	Epigas.	None	IV <sub>A</sub>	ERCP/CT	Bm	PD	pap/fm	
24.	Our case (1991)	57/F	Epigas	None	I	US/CT/ERCP	Bmi	Cy-x	tub/fm	1 y 2 m, alive

C.C. : chief complaint hypo. : hypochondralgia Epigas. : Epigastralgia GB-x : cholecystectomy  
 Cy-stomy : Cyst-duodenostomy Probe : probe laparotomy class. : classification PD : pancreatoduodenectomy  
 cy-x : cystectomy pap : papillary adenocarcinoma tub : tubular adenocarcinoma

検討で、癌の微小病変を認めた。

病理組織所見：組織学的には囊腫壁の大部分は上皮の剝離と再生像を示していたが、囊腫の中部に局所的に高分化型管状腺癌よりなる病巣があり、線維筋層(fm)までの浸潤を示していた(Fig. 5)。さらに下方、造影のために切離し残っていた囊腫最下端部の上縁にも線維筋層まで浸潤する癌の存在を認めた。両者の病変には連続性を認めなかった。

術後経過：患者は術後順調に経過し、術後1年2か月の現在健在で、再発の徴候なく外来で観察中である。

### 考 察

膵胆道合流異常を伴う先天性胆管拡張症に胆道癌が高率に合併することが知られている<sup>1)</sup>が、これら合併例では発見時すでに進行癌であることが多く<sup>1)</sup>、本邦での深達度 fm までの早期胆管癌合併例切除の報告は、われわれが集計しえたかぎり、これまでに24例あるにすぎない<sup>2)~12)</sup>(Table 1)。うち術前に癌の疑診がなされていたものは17例71%で、残る29%は術後の組織学的検査で判明したものである。術前診断は主としてERCPとUSあるいはCTでの腫瘤陰影の存在でなされている。われわれは胆汁中の腫瘍マーカーを測定したが、胆管炎の存在で高値をしめすため<sup>13)14)</sup>、その診断的意義は少ないと考えている。長谷川ら<sup>2)</sup>は、拡張症においてなめらかな胆管内腔に突然隆起性病変が認められその辺縁が不整である場合には、その癌化が疑われる、と指摘している。これは早期胆管癌では乳頭型腺癌が多いことを反映しているものと考えられようが、早期胆管癌を発見していくうえで重要な所見といえる。われわれの症例でも、術前にUSならびにERCPにて腫瘤陰影を認めたため、癌の合併を強く疑い手術施行した。しかし、術中切除標本を確認するに画像診断に一致する腫瘤性病変は肉眼的に認められなかった。術前のPTCDが原因で腫瘤の脱落をみたものか、腫瘤陰影は癌とは無関係の単なる壊死物質であったものかはいなかな不明である。高ら<sup>12)</sup>、神沢ら<sup>15)</sup>は剝離腫瘍片が存在していた症例を報告している。しかし、そのもとの付着部位は不明で、かならずしも切除標本での癌存在部位に一致していない点に注意すべきであろう。われわれの症例ではさらに、切除標本での迅速病理診断が陰性であったため、良性胆管囊腫との判断のもと囊腫切除を遂行したわけであるが、あらためて術中診断の困難さを思い知らされたといえる。肉眼的に同定できない微小胆管癌では、一部の胆管上皮のみを鏡検する術中迅速組織診断で癌の有無を判定する

のは不可能な場合が多い。切除胆管の迅速捺印細胞診の併用で、広範囲の粘膜病変のスクリーニングが必要と考えられた。

本邦報告例によると、早期胆管癌を合併せるCBDは戸谷分類によるI型とIV<sub>A</sub>型のみで、手術術式は膵頭十二指腸切除(PD)が9例、囊腫切除が15例であった。PD施行の8例は術前に癌の診断がなされていたが、癌診断のなかった7例では6例で囊腫切除術が施行されている。すなわち、癌疑診のあるものは積極的にPDを、癌診断の術前診断がなかったものは囊腫切除に止める傾向がみられる。適切な術式は、症例の積み重ねにもとづく長期予後の検討の上で選択されるべきものであろうが、長谷川ら<sup>2)</sup>の調査時点(1988)では、PD施行の4例中4例が、一方囊腫切除術では7例中2例のみに3年以上の長期生存をみている。囊腫切除後の遺残胆管よりの発癌の報告<sup>16)</sup>があり、われわれは囊腫の膵側切離線は合流部直上としたが、以上のような観点からすると、本症例は術前画像診断にて癌疑診をえていたことより、PDを施行しなかったことが悔やまれる。今後注意深い経過観察をしていくつもりである。

### 文 献

- 1) 戸谷拓二, 渡辺泰宏, 藤井 正ほか: 膵・胆管合流異常および先天性胆道拡張症における癌発生一本邦報告例303例の集計からの反省一. 胆と膵 6: 525—535, 1985
- 2) 長谷川浩, 高田忠敬, 安田秀喜ほか: 先天性胆管拡張症に合併した早期胆管癌の1例一本邦集計例をふまえて一. 胆道 2: 109—115, 1988
- 3) 中口和則, 遠藤省三, 吉川宣輝ほか: 先天性胆道拡張症を伴った総胆管胆嚢重複癌の1例. 日消外会誌 16: 1544—1548, 1983
- 4) 山際裕史, 川村慶三, 藤岡正樹ほか: 胆嚢癌, 胆管癌の合併がみられた膵胆管合流異常, 胆管拡張症例. 胆と膵 7: 105—108, 1986
- 5) 山瀬博史, 二村雄次, 早川直和ほか: 経皮経肝胆道鏡検査にて術前診断しえた胆管癌合併先天性胆管拡張症の1例. 日消外会誌 19: 791—794, 1986
- 6) 橋本光代, 竹内和男, 中島正男ほか: 胆嚢癌と胆管癌を合併した先天性総胆管拡張症の1例. 日消病会誌 84: 935—939, 1987
- 7) 橋村直毅, 松本道男, 鈴木不二彦ほか: 先天性胆道拡張症に合併した早期胆管癌の1例. 胆と膵 9: 857—863, 1988
- 8) 土江建嗣, 稲垣喜治, 井尾正典ほか: ERC断層撮影にて発見された先天性胆管拡張症に合併した早期胆管癌の1例. 胆と膵 10: 1635—1639, 1989
- 9) 佐藤幸彦, 森田 稔, 目黒順一ほか: 血管造影にて

- 診断し得た先天性総胆管拡張症合併胆管癌の 1 例. 胆と膵 11: 653—657, 1990
- 10) 奥平定之, 山本賢輔, 浦川聡史ほか: 膵・胆管合流異常を伴う先天性胆道拡張症に合併した早期胆管癌の 1 例. 胆と膵 11: 975—979, 1990
- 11) 岡山直司, 宮本忠寿, 黒川 隆: 高齢者にみられた粘膜内胆管癌を合併した先天性胆道拡張症の 1 例. 日消病会誌 88: 105—110, 1991
- 12) 高 濟峯, 吉川周作, 畑 芳樹ほか: 胆管癌と膵石を併存した先天性総胆管拡張症の 1 手術例. 日消外会誌 24: 1295—1299, 1991
- 13) Albert MB, Steinberg WM, Henry JP: Elevated serum levels of tumor marker CA19-9 in acute cholangitis. Dig Dis Sci 33: 1223—1225, 1988
- 14) 田中信孝, 登 政和, 進藤俊哉ほか: 膵十二指腸切除を施行した総胆管結石症を合併せる膵管胆道合流異常の 1 例. 胆と膵 12: 1413—1417, 1991
- 15) 神沢輝美, 田畑郁男, 伊沢友明ほか: 先天性胆道拡張症に合併した広範囲粘膜進展 af 胆管癌の 1 切除例. 胆と膵 11: 627—630, 1990
- 16) 中西 徹, 大森美和, 小川博康ほか: 膵管胆管合流異常を伴う先天性胆道拡張症に合併した胆管末端癌の 1 例. 胆と膵 4: 247—252, 1983

### A Case of Early Bile Duct Carcinoma Associated with Congenital Dilatation of the Bile Duct

Nobutaka Tanaka, Masakazu Nobori, Shunichi Yumoto, Kiyoshi Mori, Junno Deguchi,  
Hiroyuki Okamoto, Jun Matsumoto and Toru Nakajima\*  
The Department of Surgery, Asahi General Hospital  
\*Division of Pathology, Teikyo University Ichihara Hospital

We have experienced a case of early bile duct cancer associated with congenital bile duct dilatation (CBD). The patient was a 57-year-old woman, who was admitted to our hospital with the chief complaint of epigastralgia. She was followed up for 10 years by our physicians after a diagnosis of CBD due to maljunction of the pancreaticobiliary system. Detection of a mass in the bile duct cyst by imaging devices prompted us to remove the choledochal cyst. We could not find a macroscopical tumor; however, pathological examination of the resected specimen revealed well-differentiated tubular adenocarcinoma invading the fibromuscular layer in the cyst wall in two places. The patient is alive and well 14 months after the operation. We have so far collected data on only 24 cases of early bile duct cancer associated with CBD in Japan. The option of the operative procedure in such a situation will be clarified after collection of long-term results in many cases.

**Reprint requests:** Nobutaka Tanaka Department of Surgery, Asahi General Hospital  
i-1326 Asahi City, 289-25 JAPAN