

## 肝門部に浸潤した肝内粘表皮癌の1 治験例

防衛医科大学第1 外科, 病院検査部病理\*

村山 道典 初瀬 一夫 寺畑信太郎\*  
青木 秀樹 玉熊 正悦

症例は33歳の男性で, 主訴は黄疸, 上腹部痛であった。腹部超音波検査で肝門部腫瘍性病変とともに閉塞性黄疸が確認されたので経皮経肝胆道ドレナージを施行した。腹部血管造影, percutaneous transhepatic cholangiography, computed tomography, magnetic resonance imagingの結果, 肝門部胆管癌と診断され, 肝左3区域門脈合併切除術を施行した。また吻合部を中心に45Gyの放射線照射を行った。腫瘍は肝内から肝門部に浸潤した3.0×2.3×4.5cmの灰白色の塊状型で, 中心に小嚢胞を伴っていた。組織学的に小嚢胞部分を中心とした粘表皮癌で周囲の浸潤部に腺癌の像を伴っていた。肝内胆管由来の粘表皮癌の報告はきわめてまれであり, 切除後長期生存の報告はない。術後20か月間経過した現在, 再発徴候なく生存している肝門部浸潤肝内粘表皮癌の症例を経験したので報告した。

**Key words:** mucoepidermoid carcinoma, intrahepatic cholangiocarcinoma

### はじめに

肝内胆管に発生した粘表皮癌は, 著者らの調べた範囲ではこれまで8例の報告<sup>1)~7)</sup>を見るに過ぎず, きわめてまれな疾患と考えられる。長期生存の報告はないが, 今回切除後20か月を経ても再発徴候はなく経過している症例を経験したので, 文献的考察を加え報告する。

### 症 例

患者: 33歳男性

主訴: 黄疸, 上腹部痛

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 平成2年10月会社の健診で肝機能異常を指摘されたが, 放置。同年12月頃より胸焼けがあり, 平成3年1月初め頃より上腹部痛および皮膚の黄染を自覚し近医を受診した。そこで閉塞性黄疸および肝門部腫瘍と診断され, 当科を紹介されて入院となった。

入院時現症: 身長171cm, 体重51kg, 栄養状態良好。眼瞼結膜に貧血はないが, 眼球結膜は強く黄染していた。頭部, 頸部, 胸部に異常はなく, また腹部も腹水なく, 肝脾および腫瘍も触知されなかった。皮膚の黄染以外四肢に異常はなかった。

入院時検査所見: 尿中および血清中のビリルビン値の上昇, 肝胆道系酵素の異常高値など, 閉塞性黄疸を

示唆する所見以外に, 軽度の貧血を認めた。腫瘍マーカーは, carcinoembryonic antigen(CEA)17.3ng/ml, carbohydrate 19-9 (CA19-9) 2,600U/ml, DUPAN-2 530U/mlと異常高値が認められた。

腹部超音波検査(US): 左右の肝内胆管の拡張があり, 肝門部に直径約4cmの辺縁不整な占居性病変を認めた。病変部はisoechoicで, 中心にhypoechoicな部分がみられた。門脈左枝は病変部に巻き込まれており, 前枝にも浸潤がみられた(Fig. 1)。以上の所見から閉塞性黄疸に対し, 平成3年1月25日, B3およびB6より超音波下に経皮経肝胆管ドレナージを施行した。

Computed tomography (CT): 肝内胆管両葉枝から総胆管にかけて境界不明瞭なlow density areaが認められ, 中心部にはcysticなlow densityが認められた(Fig. 2)。

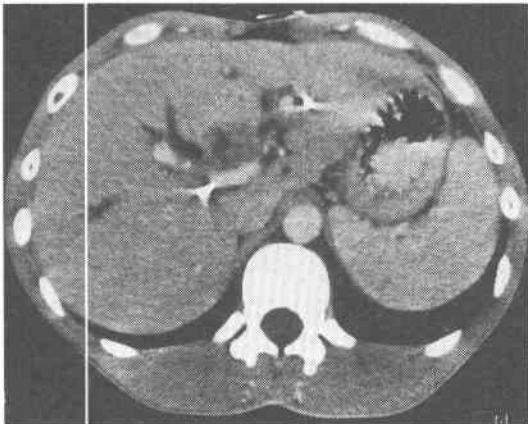
Magnetic resonance imaging (MRI): 肝門部に直径3cmの占居性病変があって, 中心部に小嚢胞もしくは壊死を思わせる部分があり, 門脈本幹から右枝に接し一部右枝内に突出, 前区域枝から左枝に沿って浸潤していた。病変部はT<sub>2</sub>強調でhigh signal intensity, T<sub>1</sub>強調でlow signal intensity, gadolinium diethylenetriamine-pentaacetic acid (Gd-DTPA) による造影効果が認められた(Fig. 3)。

Percutaneous transhepatic cholangiography (PTC): B5およびB8が造影されなかったため, B5にも穿刺し造影した。左右とも2次分枝まで浸潤が疑わ

**Fig. 1** Abdominal ultrasonography showing dilatation of the intrahepatic bile duct and space occupying lesion of the liver hilum



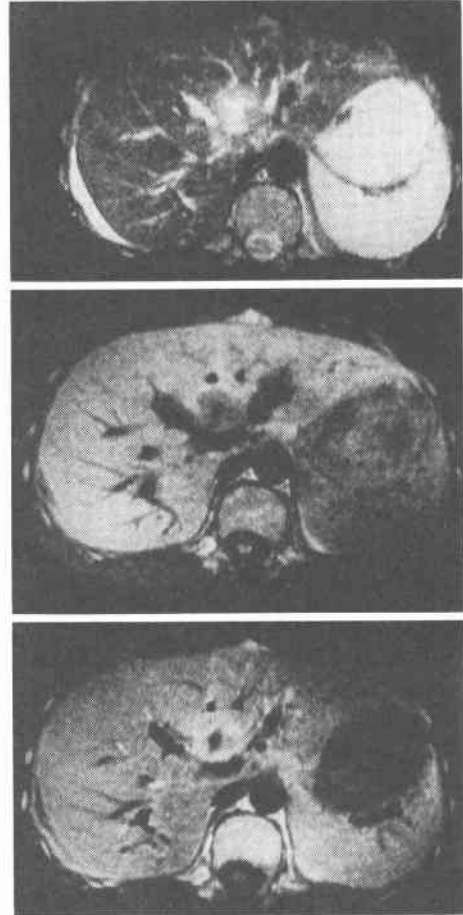
**Fig. 2** Computed tomography showing low-density mass with cystic lesion in the center



れた。腫瘍中心部の嚢胞部との交通は認められなかった (Fig. 4)。

腹部血管造影：門脈左枝の狭窄および分岐部から右

**Fig. 3** Magnetic resonance imaging. T<sub>2</sub>-weighted image shows the tumor is high signal intensity (upper). T<sub>1</sub>-weighted image shows the tumor is low signal intensity (middle), and after injection of Gd-DTPA it is high signal intensity (lower).

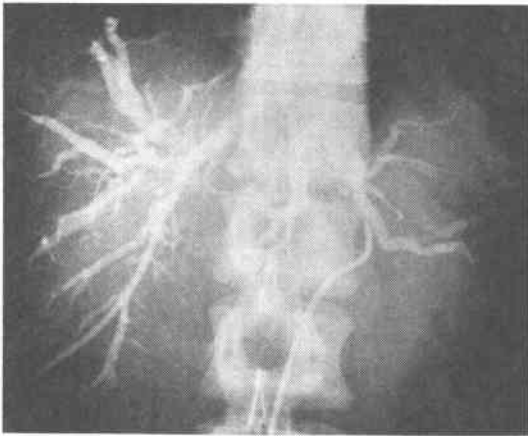


枝上縁の硬化を認めた。動脈系の異常は認められなかった。

胆汁細胞診：class III

手術所見：肝門部胆管癌の診断で平成3年3月7日手術を施行した。腫瘍は肝門部に硬く触知された。腹水および腹膜播種は認められず、肝十二指腸靱帯に転移を示唆するリンパ節腫大はなく、傍大動脈リンパ節(16b)の迅速病理診断で転移が認められなかったので根治的切除術をすることとした。胆嚢別出後、総胆管断端の迅速病理診断で癌浸潤のないことを確認した後、門脈合併切除を伴う肝左3区域、総胆管切除術を施行した。

**Fig. 4** Cholangiography showing tumor invasion to the second bifurcation of the bilateral hepatic duct and no cystic lesion



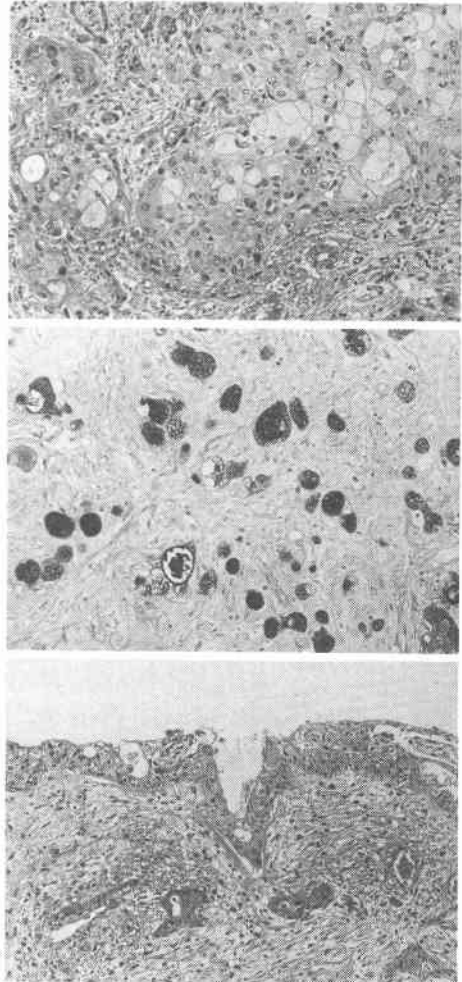
**Fig. 5** The left trisegmentectomy specimen contained a graywhite nodular tumor with cystic formation, 3.0×2.3×4.5cm, which invaded into the liver hilum



手術標本所見：肝内から肝門部に浸潤するように、3.0×2.3×4.5cmの灰白色の塊状型の腫瘍があり、中心に小嚢胞部分を伴っていた（Fig. 5）。

病理組織所見：腫瘍は goblet cell と、squamous differentiation を伴った異型細胞の増生からなり、mucoepidermoid carcinoma の像を示していた。腫瘍中心の嚢胞部分は壊死による変性嚢胞とは異なり、嚢胞内面は異型を伴って粘液を含む腺様細胞と扁平上皮様細胞でおおわれ、一部自潰し前記の腫瘍細胞と連続していた（Fig. 6）。周辺の浸潤部は高円柱状の上皮細胞からなる管状腺癌の像を認めた。腫瘍細胞は脈管侵襲や神経周囲浸潤を示しており、B6、B7の周囲間質に

**Fig. 6** Carcinoma consists of mucus-containing goblet cell and atypical squamoid cell (upper; HE, ×200). Carcinoma with many mucus-containing cells (middle; Alcian-blue and PAS double staining, ×200) Cyst wall having mucus-containing cell and atypical squamoid cell (lower; HE, ×150)



も浸潤が及んでいたが、肝断端、総胆管断端への浸潤は認められなかった。また摘出リンパ節(8a, 8p, 12, 13a)には転移は認められなかった。

術後経過：術後胆管吻合部より胆汁のもれがあり発熱したが、ドレナージにて軽快した。B6、B7周囲間質に腫瘍細胞浸潤がみられ神経周囲浸潤も陽性であったので、胆管空腸吻合部を中心に術後36日目から45Gyの radiation を施行した後、5月31日退院した。平成4年11月7日現在、再発徴候を認めず外来通院中である。

Table 1 Reported cases of mucoepidermoid carcinoma of the liver

Authors	Patient (age/sex)	Presenting symptoms and Sign	Site of tumor	Size (cm)	Operation	Prognosis
Pianzola <sup>1)</sup>	44/M	Cholangitis Hepatomegaly	Right	15×10×10	Right Hepatectomy	Died, 45 days after surgery
Ho <sup>2)</sup>	65/M	Cholangitis Hepatomegaly	Right	8×7×6	Wedge biopsy	Died, 2 weeks after laparotomy
Ho	63/F	Obstructive jaundice Hepatomegaly	Left	6	None	Died, 16 days after admission
Koo <sup>3)</sup>	44/F	Cholangitis Hepatomegaly	Left	12	Left Hepatectomy	Died, 6 months after operation
Katsuda <sup>4)</sup>	78/M	Hepatomegaly	Left	11×10×6.5	None	Died, 3 months after admission
Lambriandies <sup>5)</sup>	59/F	Right upper abdominal pain, Jaundice	Right	18	None	Died, 2 weeks after operation
Hayashi <sup>6)</sup>	46/F	Hypochondralgia	Left	2.5×1.5×1.5	Tumor Resection	Died, 11 months after operation
Sasaki <sup>7)</sup>	77/M	Dyspnea Hepatomegaly	Right	occupied the right lobe	none	Died, 15 days after admission
Present case	33/M	Obstructive jaundice	Left	3.0×2.3×4.5	Left triseg- mentectomy	Living, 20 months after operation

### 考 察

Mucoepidermoid carcinoma は唾液腺にしばしば発生する腫瘍であり、扁平上皮様細胞、粘液産生細胞、中間型細胞をあわせもった組織像を示す<sup>8)</sup>。唾液腺以外では肝<sup>9)</sup>、食道<sup>10)</sup>などの報告例があり、それぞれ気管支腺、食道腺がその発生母地として考えられている。Terada ら<sup>11)</sup>は、以前より肝内胆管付属腺の存在を指摘しており、本例においても腫瘍中心部の嚢胞周辺にはこれらの付属腺の混在およびその増生所見が認められ、本症例の腫瘍がこれらの付属腺より発生した可能性が考えられる。

従来、肝内胆管由来の mucoepidermoid carcinoma は adenosquamous carcinoma や adenoacanthoma と組織像の類似性から一括して扱われ用語の統一がなされていない<sup>12)</sup>。Adenosquamous carcinoma の組織発生は腺癌の扁平上皮癌化<sup>13)</sup>や扁平上皮化した胆管由来であると考察されており<sup>14)</sup>、本症例の腫瘍発生とは異なる可能性がある。腫瘍発生の見地から mucoepidermoid carcinoma についてはほかとは区別して扱う必要があると考えられる。

肝内 mucoepidermoid carcinoma として報告されている例は、われわれが検索した範囲ではこれまで 8 例しかない (Table 1)。いずれの報告でも転帰は不

良であるが、根治的切除術が施行されている例はなく、腫瘍がかなり進行してから発見されている例がほとんどである。本症例では比較的早期に肝門部に浸潤して黄疸症状が出現したため、根治切除が可能ならうちに発見されたのかもしれない。

長期生存には根治切除が不可欠であると考えられるが、自験例では切除した後区域胆管の間質に腫瘍細胞浸潤が認められたため、術後放射線照射を施行した。唾液腺の mucoepidermoid carcinoma では術後放射線治療の有効性が認められている<sup>15)</sup>が、本症例においても術後照射の効果があったものと推察される。

### 文 献

- 1) Pianzola LE, Durt R: Mucoepidermoid carcinoma of the liver. *Am J Clin Pathol* 56: 758-761, 1971
- 2) Ho JCI: Two cases of mucoepidermoid carcinoma of the liver in Chinese. *Pathology* 12: 123-128, 1980
- 3) Koo J, Ho J, Wong J et al: Mucoepidermoid carcinoma of the bile duct. *Ann Surg* 196: 140-148, 1982
- 4) Katsuda S, Nakanishi K, Kajikawa K et al: Mucoepidermoid carcinoma of the liver. *Acta Pathol Jpn* 34: 153-157, 1984
- 5) Lambriandies AL, Askew AR, Lefavre I:

- Thorotrast-associated mucoepidermoid carcinoma of the liver. *Br J Radiol* 59 : 791-792, 1986
- 6) Hayashi I, Tomoda H, Tanimoto M et al: Mucoepidermoid carcinoma arising from a preexisting cyst of the liver. *J Surg Oncol* 36 : 122-125, 1987
- 7) 佐々木泰史, 日野田裕治, 高山義一ほか: 肝内胆管粘表皮癌の一例. *日消病会誌* 88 : 1110-1115, 1991
- 8) Seifert G: *Histological typing of salivary gland tumours*. Springer-Verlag, Berlin, 1991, p20-21
- 9) Marchevsky AM, Koss MN: *Tumors of bronchial gland origin*. Edited by Marchevsky AM. *Surgical pathology of lung neoplasms*. Marcel Dekker, New York, 1990, p289-290
- 10) 井出博子, 遠藤光夫: 食道の臨床病理. 医学書院, 東京, 1984, p38-45
- 11) Terada T, Nakamura Y, Ohta G: Glandular elements around the intrahepatic bile ducts in man: Their morphology and distribution in normal livers. *Liver* 7 : 1-8, 1987
- 12) 万代光一, 森脇昭介, 土井原博義ほか: 肝原発の腺扁平上皮癌と扁平上皮癌. *癌の臨* 35 : 1439-1447, 1989
- 13) 武藤良弘, 内村正幸, 脇 慎治ほか: 胆道の腺扁平上皮癌症例の臨床病理学的検討. *癌の臨* 28 : 440-444, 1982
- 14) 湯浅典博, 中井堯雄, 大場 清ほか: 扁平上皮化生をともなった下部胆管腺扁平上皮癌の1例. *日消外会誌* 20 : 2782-2785, 1987
- 15) Auclair PL, Eliss GL: *Mucoepidermoid carcinoma*. Edited by Eliss GL, Auclair PL, Gnepp DR. *Surgical pathology of the salivary glands*. Saunders, Philadelphia, 1991, p289-323

### A Case Report of Mucoepidermoid Carcinoma of the Liver

Michinori Murayama, Kazuo Hatsuse, Shintaro Terahata\*, Hideki Aoki and Shoetsu Tamakuma  
 First Department of Surgery, National Defense Medical College  
 \*Clinical Laboratory, National Defense Medical College Hospital

A 33-year-old man complained of jaundice and upper abdominal pain. Abdominal ultrasonography revealed obstructive jaundice with tumor of the liver hilum, and we performed percutaneous transhepatic bile drainage. Cholangiography, computed tomography, magnetic resonance imaging, and angiography provided the diagnosis of hilar cholangiocarcinoma, and we performed left trisegmentectomy with resection of the portal vein. A total of 45 Gy of postoperative radiation was given to the site of anastomosis. The intrahepatic tumor invaded into the liver hilum, measuring 3.0 × 2.3 × 4.5 cm. The cut surface was gray-white, round in shape and revealed a cystic lesion in the center of the tumor. Microscopically, the center of the tumor with cyst was mucoepidermoid carcinoma, accompanied with the feature of adenocarcinoma at the peripheral site. Mucoepidermoid carcinoma arising from the intrahepatic bile duct is very rare, and no case of long-term survival has been described. A patient with mucoepidermoid carcinoma of the liver, who is alive 20 months after surgery and has no sign of recurrence, is reported.

**Reprint requests:** Michinori Murayama First Department of Surgery, National Defense Medical College  
 3-2 Namiki, Tokorozawa, 359 JAPAN