日消外会誌　27（3）：801～805，1994年

胆摘後右肝管に発生した断端神経腫の1例

国立がんセンター東病院外科，同　病理*
小西　大　竜　崇正　木下　平　河野　至明
谷崎　裕志　新井　仁秀　長谷部孝裕*

胆摘後断端神経腫はまれな疾患であるが，胆管狭窄を来した場合胆管癌との鑑別が問題となる．今回われわれは胆摘後右肝管に発生した症例を経験したので報告する．症例は68歳の女性．主訴は背部痛．13年前，他院にて胆石のため胆嚢摘出術を受けていた．今回胆道造影にて右肝管の閉塞を認め，胆管癌の診断にて拡大肝右葉切除を行った．病理組織学的には閉塞部に一致して神経腫を認めた．前回胆石手術施行に際し，胆嚢管が右肝管より分岐していたため術中右肝管を損傷しており，これに起因する胆管断端神経腫と診断した．

胆管断端神経腫本邦報告27例の検討により黄疸にて発症し，胆管狭窄を示した場合胆管癌との鑑別は困難である．詳細な既往歴の聴取，胆道鏡，術中迅速病理診断が鑑別に有用である．治療法は腫瘤を伴う狭窄部胆管の切除が妥当であると考えられた．

Key words：amputation neuroma，benign biliary tract stenosis，bile duct cancer

はじめに

胆管狭窄を示す疾患は常に胆管癌との鑑別が問題となる．胆管断端神経腫はまれな疾患であるが，胆管狭窄を示すことが多く，かつ初回胆嚢摘出術より長期経過後発症することから胆管癌との鑑別が困難な場合が多い[1)2)]．今回われわれは胆摘後右肝管に発生した胆管断端神経腫の症例を経験したので，その臨床所見を報告するとともに，自験例を含めた本邦報告27例についての検討を加え報告する．

症　例

患者：68歳，女性

主訴：背部痛

家族歴：特記すべきことなし．

既往歴：1979年胆嚢結石にて胆嚢摘出術．

現病歴：1992年12月，背部痛にて近医受診し，胆道系酵素の異常を指摘された．Endoscopic retrograde cholangiography（以下，ERCと略記）にて胆管右枝は描出されず，computed tomography（以下，CTと略記），ultrasonography（以下，USと略記）にて右肝内胆管の拡張を認めた．以上より肝門部胆管癌の診断にて当院紹介され，1993年1月25日入院となった．

入院時現症：黄疸・貧血は認めず，腹部は平坦・軟で上腹部正中に前回の手術創がみられた．

入院時検査所見：血液検査にてT. Bilは0.4mg/dlと正常範囲内であったが，ALP 411IU/dl，rGTP 57 IU/dlと胆道系酵素は上昇していた．またAlbは3.5 g/dlと軽度低下を認めた．腫瘍マーカーは正常値であった．

画像診断所見：胆道系精査のため，両側胆管より経皮経肝胆管ドレナージを施行した．胆道造影では右肝管は閉塞していたが，閉塞端の辺縁は滑らかであり，左右肝管合流部は右側にひきつれていた．また，肝内胆管は両側とも軽度拡張しており，総胆管内には結石を1個認めた（**Fig. 1**）．USにて肝内胆管の拡張をみるが腫瘤影は認められず，CTにても同様の所見であった（**Fig. 2**）．血管造影では癌の脈管浸潤を疑わせる所見はなかった．また門脈相では門脈臍部が描出されず，内側区域の欠損が疑われた．胆汁細胞診では癌細胞陰性であった．胆道鏡は閉塞部の内瘻化が行えず断念した．以上より確診は得られなかったが，肝門部胆管癌の診断にて2月16日開腹手術を行った．

手術所見：肝門部の癒着を剝離すると右肝管周囲に硬結を触知し，触診でも胆管癌と診断した．予定通り肝右葉切除・右側尾状葉切除・胆管切除・リンパ節廓清（R2＋No. 16）・術中照射20Gyを行った．また，右肝動脈・門脈を処理した時点で鎌状靱帯まで阻血域が広がり，術前診断通り内側区域は欠損していた．この

＜1993年11月1日受理＞別刷請求先：小西　大
〒277　柏市柏の葉6－5－1　国立がんセンター東病院外科

Fig. 1 Percutaneous transhepatic cholangiography showed the obstruction of the right hepatic duct with a smooth margin, and a common bile duct stone.

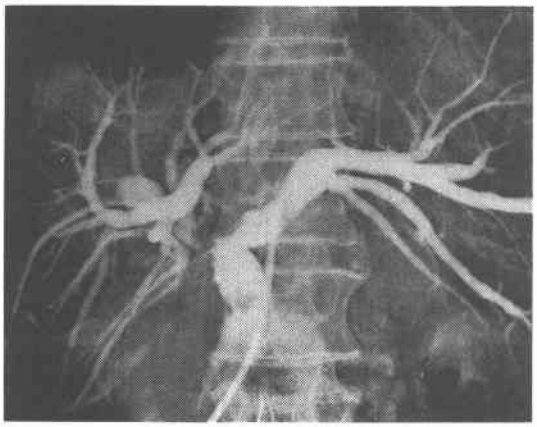
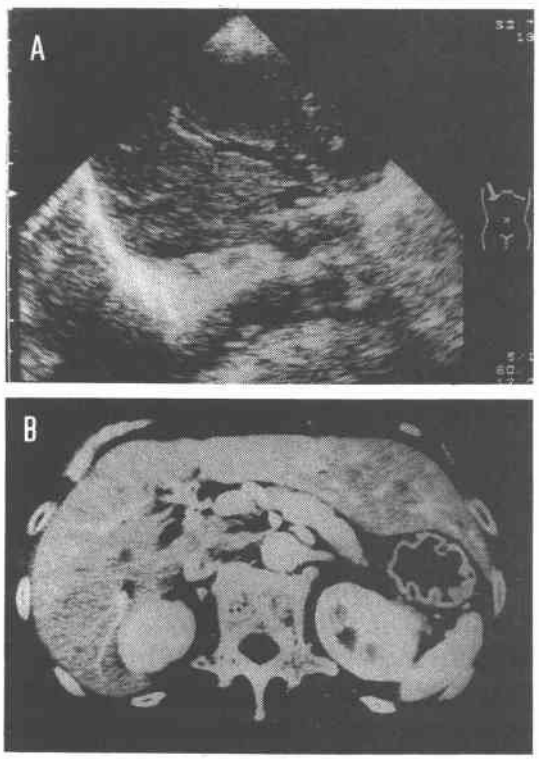


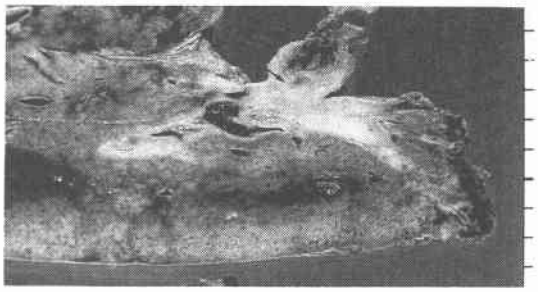
Fig. 2 Ultrasonography (A) and computed tomography (B) showed the intrahepatic bile duct dilatation. But no tumor were seen.



他総腸間膜症もみられた.

切除標本肉眼所見：切除標本の割面にて右肝管は1cmにわたり閉塞しており，この部に一致して径8mmの灰白色腫瘤を認めた（**Fig. 3**）.

Fig. 3 Cut surface of the surgical specimen showed white-grayish tumor 8mm in diameter in the biliary obstructive portion (arrow).



病理組織学的所見：狭窄部胆管上皮に悪性所見はなく，同部の灰白色腫瘤は胆管固有層から繊維筋層に広がる大小様々な大きさの神経束の増生よりなっていた．周囲グリソン鞘内には強い線維化と炎症細胞の浸潤がみられた．しかし，肝実質内に胆汁鬱滞の所見はあまり目立たなかった（**Fig. 4**）.

術後経過：術後，胆摘を行った病院に問い合わせたところ，前回手術時胆嚢管は右肝管より分枝しており，胆嚢摘出に際して右肝管を損傷したため，縫合閉鎖とT-tube挿入がなされていたことがわかった．以上より胆摘後胆管断端神経腫の診断を得た．術後創感染を合併したが5月12日退院し，術後8か月目の現在元気に日常生活を送っている.

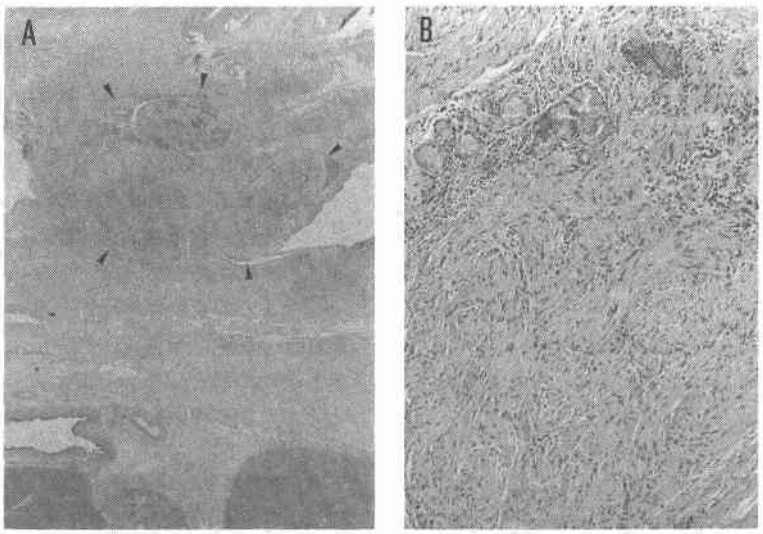
考　察

断端神経腫（amputation neuroma）は神経線維の遠位部切除により，近位の神経線維が過剰に再生し，線維組織に覆われた結節を形成したものである．胆管周囲に発生する断端神経腫は1928年，Husseinoff[3]により初めて報告され，胆嚢摘出術などの術後に多くみられる疾患である.

本邦報告例からみた発生頻度は胆嚢摘出術後の0.23%と非常に低率であるが[4]，Peisonら[5]は，胆嚢手術後6か月以内に死亡した40例の剖検を行ったところ，11例（27%）に断端神経腫を認めたと報告しており，無症状のものを入れればかなりの高頻度であることが推測される.

手術既往のないspontaneous neuromaや外傷性の報告もみられるが，今回は明らかに手術既往のある胆道断端神経腫の本邦報告例30例のうち，詳細な記載の

Fig. 4 A: The nodule caused obstruction of the right hepatic duct (arrows, hematoxylin-eosin, ×1). B: The nodule consisted of hypertrophic nerve fibers surrounded by fibrous conective tissue (hematoxylin-eosin, ×100).



ある26例[1)2)6)7)]と自験例を合わせた27例について検討を行った.

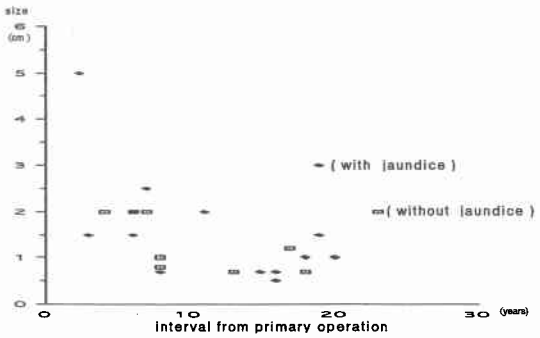
年齢は32～78歳，平均57.7歳であり，50～60代に集中している．男女比は2.4：1と男性に多く，胆石症と逆の結果を示していた.

前回手術は胆嚢摘出術が16例，胆嚢摘出術＋胆管切開が9例(総胆管切開8例，右肝管損傷1例)，胃切除2例であった．以上のように胆嚢摘出術やリンパ節廓清に伴う胆管周囲の神経損傷が成因となるが，胆嚢摘出術に胆管切開の付加されている頻度は9/25（36%）であり，特に過大浸襲例に高率とはいえなかった．またその発生に男性ホルモンが関与するという報告もある[8)]．

前回手術から症状発現までの期間は平均7.7年(2か月～23年）と長く，断端神経腫の手術までとなると平均11.7年（1～23年）とさらに長くなる．Peisson ら[5)]の報告では，6か月以内に27%の発生をみていることから，その発生はかなり早い時期と考えられるが，自験例では胆汁の性状や病理所見から右肝管が閉塞したのは最近と推測でき，断端神経腫の発育が緩徐であるため症状発現までの期間が長いと考えられる．しかし，手術時の神経腫の大きさ・症状発現時期・症状の種類には相関は認められなかった（**Table 1**）.

症状としては黄疸と疼痛に大別できる[9)10)]．本邦では黄疸の認められたものが17例（63%）であり，それに発熱や疼痛を併発していた．そのほかの症例は上腹部痛や不快感が主訴となっていた.

Table 1 Relationship between size of the tumor and interval from primary operation



存在部位との関係についてみると，遺残胆嚢管周囲に発生したものは3例で，全例疼痛で発症しており，胆管の狭窄像はみられず，黄疸は1例（33%）に認めたのみであった．いずれも良性疾患の診断にて遺残胆嚢管切除が行われている．これに対し3管合流部を中心とした肝外胆管周囲に発生した23例は，全例に胆管の狭窄もしくは閉塞の所見を認めており，16例(70%)に黄疸を認めた（**Table 2**）．術前診断は，8例が胆管癌，2例が胆管癌疑い，4例が癌を否定しきれず手術となっている．胆管狭窄を示す症例で，術前良性疾患

Table 2 Symptoms and cholangiography according to the location

Location	No. of the cases	Jaundice	Cholangiography
Cystic duct	3	(−) 2 (+) 1	No findings 3
Extra hepatic bile duct	23	(−) 7 (+) 16	Stenosis 16 Obstruction 7
Right hepatic duct	1	(−) 1	Obstruction 1

と診断されたものは1例のみであった.

術式は癌の診断のもとに拡大手術2例，胆管切除＋リンパ節廓清2例，切除不能と判断されたものが1例であった．このように過大浸襲が加えられる場合が多い点からも正確な術前診断が求められる.

自験例で術前に良性疾患と考えるべきであった根拠として，1）手術既往があること，2）術中にトラブルが起き，これに起因すると考えられたこと，3）腫瘤影を認めなかったこと，4）胆管狭窄像が限局した平滑な辺縁を持つこと，5）血管造影にて所見を認めなかったこと，6）胆汁細胞診が癌細胞陰性であったことなどが挙げられる．しかしこれだけでは，胆管癌を完全には否定できない．胆道造影にて一側性の圧排像が特徴的所見であるとの報告もあるが[11]，報告例のほとんどが全周性の狭窄を示しており，胆管像からも癌との鑑別は困難と考えられる．たとえ画像診断にて腫瘤を描出し得たとしてもリンパ節との鑑別は困難である．しかし断端神経腫は壁外の病変であり，胆管癌との最大の違いは粘膜所見であることから，胆道鏡による粘膜の観察や生検にて胆管癌を否定しうると考えられる．また，術中迅速病理診断にて癌を否定しえた症例もあり[6]，ある程度良性を考えていれば，狭窄部の迅速病理診断を行うべきであろう.

予防法としては胆嚢管周囲の神経線維を丹念に剝離し，神経を鋭的に切離することが挙げられているが[9)12)]，現実的には完全な予防は不可能と考えられる.

治療としては，報告例のうち良性疾患の診断がついた症例は胆管切除・遺残胆嚢管切除・腫瘤切除が行われ，良好な結果を得ている．これに対し，胆管狭窄部を解放できなかった1例は術後3年目に肝不全で死亡している．したがって狭窄部があれば手術的に解除する必要があり，腫瘤を含む胆管切除が標準術式として妥当と考えられる．また狭窄部の位置により膵頭十二指腸切除が2例に，肝切除が1例に行われている．本症例は胆嚢管が右肝管より分岐していたため右肝管に発生した特殊な症例であり，左右肝管合流部より上部に発生した報告例は本邦で初めてであった．そのため，術中の検索や生検などは困難であり，癌の診断のまま，拡大肝右葉切除とリンパ節郭清が行われた．狭窄部の完全切除と手術の安全性の面からも，肝切除が適切な選択であったと考えているが，リンパ節郭清や術中照射は不必要であった．したがって本症を疑った場合は，リンパ節郭清の前にまず狭窄部を含めた胆管の切除を行い，その術中迅速病理診断の結果で，手術方針を決定すべきであると考える.

以上より胆管断端神経腫の鑑別には，術前の詳細な既往歴の採取，胆道鏡，術中迅速病理診断が有用であり，また治療としては，胆管狭窄を伴っていれば腫瘤とともに狭窄部胆管を切除すべきと考える.

文　献

1) 四宮義浩，上尾裕昭，渡辺大介ほか：胆石手術後に発生した総胆管断端神経腫の1例．日臨　外医会誌　52：1592—1596，1991
2) 藤野泰宏，佐藤美春，斉藤洋一：胆摘後2か月で発症した胆管断端神経腫の1例．日消外会誌　24：2437—2441，1991
3) Husseinoff D：Ueber einen Fall von Wucherung des Nervengewebes nach Wiederholten Operationen der Gallengange. Zentralbl Pathol 43：344—348，1928
4) 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
5) Peison B, Benisch B：Traumatic neuroma of the cystic duct in the abscence of previous surgery. Human Pathol 16：1168—1169，1985
6) 佐野佳彦，小里俊幸，大竹剛靖ほか：総胆管結石を合併した胆摘後胆管断端神経腫の1例．胆と膵　12：195—199，1991
7) 横田昌明，飯田修平，戸嶋暢之ほか：胆摘後の総胆管神経腫の1例．日消外会誌　23：2634—2638，1990
8) 佐藤太一郎，七野滋彦，秋田幸彦ほか：胆摘後の断端神経腫一症例と本邦報告例について．外科　46：533—536，1984
9) Womack NA, Crider RL：The presence of symptoms following cholecystectomy. Ann Surg 126：31—55，1947
10) Chu PT：Benign neoplasms of the extrahepatic biliary ducts, Review of the literature and report of a case of fibroma. Arch Pathol 50：84—97，1950
11) 武田　功，中野　哲，北村公男ほか：胆摘後

Amputation Neuroma の1例. 日消病会誌 75：760—763, 1978
12) Hume RH, Buxton RW： Postcholecystectomy amputation neuroma. Am Surg 20：698—708, 1954

A Case Report of Amputation Neuroma of the Right Hepatic Duct Following Cholecystectomy

Masaru Konishi, Munemasa Ryu, Taira Kinoshita, Noriaki Kawano, Hiroshi Tanizaki, Yoshihide Arai and Takahiro Hasebe*
Department of Surgery, Department of Pathology*, National Cancer Center Hospital East

When amputation neuroma causes biliary stricture, it is difficult to distinguish it from bile duct cancer. A case of amputation neuroma of the right hepatic duct after cholecystectomy is reported. A 68-year-old woman was hospitalized with complaints of back pain. She had undergone cholecystectomy 13 years previously. She was diagnosed as having bile duct cancer because percutaneous transhepatic cholangiography revealed obstruction of the right hepatic duct. We performed extended right lobectomy. Histological examination revealed amputation neuroma in the obstructive portion as a result of the previous cholecystectomy. Analysis of 27 cases reported in Japan indicated that cases of stricture of the bile duct with jaundice were difficult to distinguish from bile duct cancer. A detailed past history, cholangioscopy and intraoperative histological examination will lead to accurate diagnosis, and resection of the bile duct with the tumor is standard therapy.

Reprint requests: Masaru Konishi National Cancer Center Hospital East
6-5-1 Kashiwanoha, Kashiwa, 277 JAPAN