

## 胆嚢原発悪性線維性組織球腫の1例

和泉市立病院外科

阪本 一次 雪本 清隆 林部 章 田中 肇  
 鬼頭 秀樹 樽谷 英二 柳 善佑 十倉 寛治  
 浅田 健蔵 竹林 淳

症例は74歳の女性。平成6年4月中旬より繰り返す心窩部不快感を主訴として来院。腹部エコー、腹部CTにて胆嚢結石および胆嚢壁肥厚とそれに接した肝内に腫瘤様病変を認め、腹部血管造影では胆嚢動脈に途絶、屈曲がみられ、右前区域枝を栄養血管とする腫瘤濃染を認めた。肝直接浸潤を伴った胆嚢癌と診断。平成6年6月7日拡大胆嚢摘出術を施行した。病理学的には悪性線維性組織球腫であった。術後照射40Gray 施行し、平成7年12月現在再発の兆候なく外来にて経過観察中である。

胆嚢原発の悪性線維性組織球腫は非常にまれで、本邦報告例は自験例を含めいまだ8例を数えるのみであった。

**Key words:** malignant fibrous histiocytoma, gallbladder

### はじめに

悪性線維性組織球腫 (malignant fibrous histiocytoma : 以下, MFH) は成人の軟部組織に好発する悪性腫瘍で、腹腔内臓器に発生することはごくまれである<sup>1)</sup>。今回胆嚢原発と考えられるMFHの1例を経験したので文献的考察を加え報告する。

### 症 例

患者: 74歳, 女性

主訴: 心窩部不快感

既往歴: 69歳緑内障, 73歳脱肛にて手術。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 数十年前より胆石症を指摘されるも放置。

平成6年4月中旬心窩部不快感出現し2~3時間で軽快したが、同様の症状を繰り返すため当院受診。腹部超音波検査、腹部 computed tomography (以下, CT) 検査にて胆嚢底部の結石および胆嚢壁肥厚とそれに接した肝内に腫瘤様病変を認め入院となった。

入院時現症: 体格中等度, 栄養状態良好, 貧血・黄疸なく, 胸部および腹部に異常所見を認めなかった。

入院時検査成績: 胆道系酵素および各種腫瘍マーカーはすべて正常範囲内であった (Table 1)。

腹部単純 X 線検査: 胆嚢に一致して輪状の石灰化像を認めた (Fig. 1)。

**Table 1** Laboratory data on admission

WBC	4,300 /mm <sup>3</sup>	TP	6.8 g/dl
RBC	385×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	ALB	4.1 g/dl
HB	12.1 g/dl	GOT	18 Ka.U
HT	36.4 %	GPT	7 Ka.U
Plt	25.7×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	T-BiL	0.6 mg/dl
BUN	13.6 mg/dl	LDH	410 Wro.U
CRE	0.5 mg/dl	ALP	4.2 K-A.U
Na	143 mEq/L	γ-GTP	13 IU/l
K	3.8 mEq/L	CEA	2.2 ng/ml
Cl	109 mEq/L	AFP	1.9 ng/ml
FBS	87 mg/dl	Elastasel	170 ng/dl
CRP	0.25 mg/dl	CA19-9	10 U/ml
		SPAN-1	16 U/ml

腹部超音波検査: 胆嚢内部に壁在結石と考えられる strong echo がみられ、肥厚した胆嚢壁と限局性の低エコー像がみられた肝右葉との境界は不明瞭であった (Fig. 2)。

Drip infusion cholangiography: 総胆管は拡張なく、十二指腸への造影剤の流出は良好であったが、胆嚢は造影されなかった (Fig. 3)。

腹部CT検査: 胆嚢結石および胆嚢壁の不整像をみると、胆嚢壁に接して肝右葉に low density area が存在した (Fig. 4A, B)。

腹部血管造影検査: 胆嚢動脈に途絶、屈曲がみられ、右前区域枝を栄養血管とする腫瘍濃染を認めた (Fig. 5)。

**Fig. 1** Plain abdominal X-ray showed ring-like calcification of the right upper abdomen in which it was expected the gallbladder exists.



以上の所見より、肝臓への直接浸潤を伴った胆嚢癌を疑い、平成6年6月7日手術を行った。手術時肝内転移、腹膜播種はなく、胆嚢壁は著明に肥厚、胆嚢床に連続する肝右葉に3cm大の腫瘤を触知し、拡大胆嚢摘出術を施行した。第2群に腫大したリンパ節は認め

**Fig. 2** Abdominal ultrasound showed stones in the wall of the gallbladder which was visualized as an irregular wall thickening, continued directly with hypoechoic mass lesion (arrow) of the anterior section of right lobe.



られず、第1群のリンパ節のみ郭清した。

胆嚢摘出標本：胆嚢壁には9個の結石が存在し、胆嚢内部は乳頭状および結節状発育を示す充実性腫瘍で

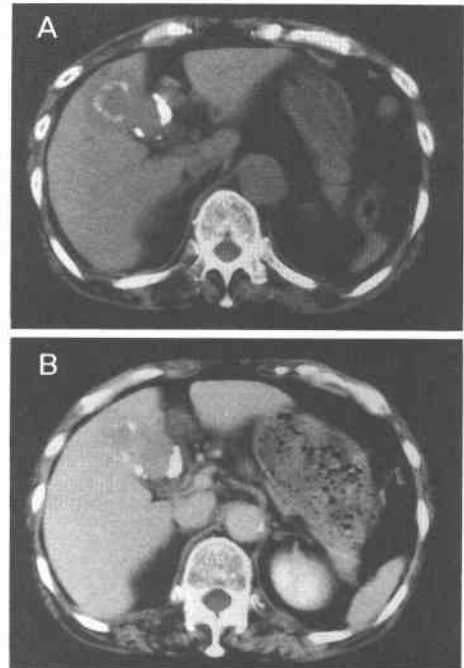
**Table 2** Reported cases of MFH originated from the gallbladder

Case	Author	Age	Sex	Symptom	Preoperative diagnosis	Treatment	Size	Gallstone	Prognosis
1	Honngo (1978)	68	F	body weight loss right hypochondralgia	gallbladder cancer	exploratory laparotomy	palm-sized	+	5m. death
2	Enndo (1982)	62	M	left hypochondrial distension, appetite loss	malignant tumor	no operation	15×15×9cm	+	death (autopsy)
3	Inoue (1982)	78	F	appetite loss	liver abscess, GS gallbladder cancer	no operation	-	+	death (autopsy)
4	Sasada (1988)	75	F	fever, abdominal pain	gallbladder abscess	cholecystectomy right hemicolectomy	13×11×9cm	-	79d. death
5	Kakuya (1989)	65	F	fever	gallbladder cancer	extended cholecystectomy, partial colectomy	-	-	8m. death
6	Miyagawa (1991)	74	F	body weight loss appetite loss	gallbladder cancer	cholecystectomy hepatectomy	6×6cm	+	12m. death
7	Sakata (1991)	75	F	abdominal pain	gallbladder stone	cholecystectomy	10×10×10cm	+	1m. death
8	Sakamoto (1994)	74	F	epigastric discomfort	gallbladder cancer	extended cholecystectomy	8×3×3cm	+	18m. alive

**Fig. 3** Drip infusion cholangiography showed no dilatation of the common bile duct and non-visualizing of the gallbladder.



**Fig. 4** Abdominal CT scan showed wall thickening of the gallbladder with stones and low density area of the anterior section of the liver continuing with gallbladder wall.



占められていた (**Fig. 6A**)。胆嚢床に連続する肝前区域に2.6×3.8cm 大の腫瘤形成を認めた (**Fig. 6B**)。

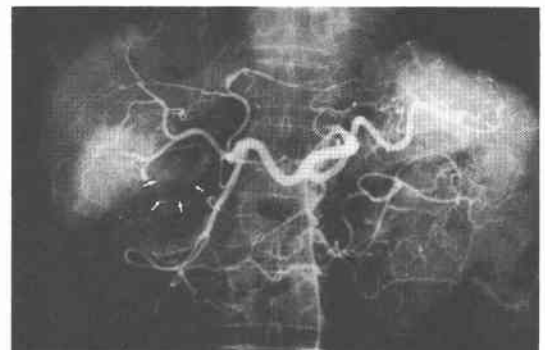
病理組織所見：HE 染色では腫瘍は細胞密度が高く、多核の破骨細胞型巨細胞や単核で泡沫状の胞体をもつ組織球様細胞と紡錘形の線維芽細胞様細胞が胞巣を形成することなく混在した (**Fig. 7A**)。腫瘍細胞はベルリン青染色陽性の鉄の微細顆粒を貪食し、免疫染色では組織球のマーカーであるリゾチーム、CD68が陽性 (**Fig. 7B**)、epithelial membrane antigen, S-100,  $\alpha$ 1-smooth muscle actin, ミオグロビンは陰性であった。Mitosis は乏しいが、核異型があり肝内への直接浸潤を認めたことから MFH の巨細胞型と診断した。組織学的にリンパ節転移はみられなかった。

術後体外照射40Gray 施行し、平成7年12月現在再発の兆候なく外来にて経過観察中である。

### 考 察

MFH は主として軟部に発生する組織球由来の悪性腫瘍で、Weiss ら<sup>1)</sup>によりその概念が確立されてから、成人の軟部肉腫中最も頻度の高い腫瘍とされている。一方、胆嚢原発の悪性腫瘍では癌腫にくらべ肉腫の発生頻度は少なく<sup>2)</sup>、肉腫のなかでも胆嚢原発の MFH

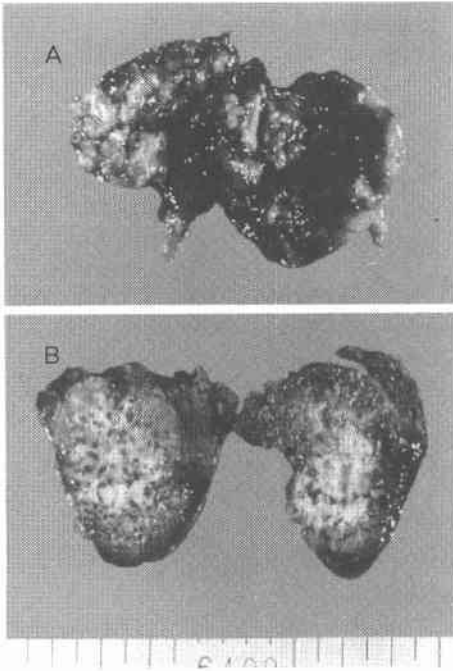
**Fig. 5** Abdominal angiography showed an encasement and stenosis in the cystic arteries (arrow) and tumor stain of the right lobe fed by the anterior branch of right hepatic artery.



は非常にまれで、本邦報告例は自験例を含め今回検索しえた限りでは8例にすぎなかった<sup>3)~9)</sup>。

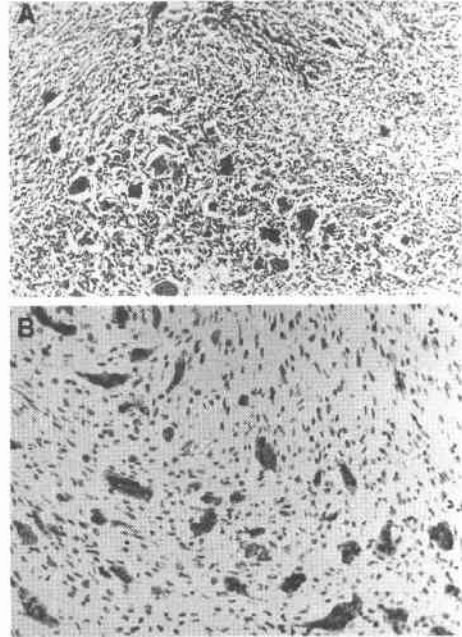
MFH の発症年齢は50~60歳台に多いとされているが<sup>10)</sup>、今回の集計例は62~78歳(平均年齢71.4歳)で、胆嚢原発症例は一般の MFH より発症年齢が高齢で

**Fig. 6** Gross appearance of the resected specimen  
A: Nine stones existed in the wall of the gallbladder which was occupied by solid tumor consisting of nodular and papillary growing. B: The resected specimen of the liver in which directly invaded.



**Fig. 7** Histopathological finding

A: The tumor was mainly composed of multinuclear osteoclastic giant cell and mononuclear cell. (H.E. staining,  $\times 100$ ). B: Specific antibody staining by CD68 was positive (CD68 staining,  $\times 100$ ).



あった。

性別では一般にMFHは2:1で男性に多く<sup>10)</sup>、胆嚢肉腫は1:2.1~5.3と女性に多いとされている<sup>11)</sup>。今回のMFH集計例は8例中7例(1:7)が女性であった。

本疾患の主要な症状は上腹部痛、右季肋部痛、体重減少、食欲不振、発熱などであったが、それらの症状は胆嚢癌でもみられる症状であり、本疾患に特徴的な症状はないようである。また、今回集計例には黄疸を主訴とした症例はなかった。

胆石合併率では、肉腫は癌腫にくらべ高率であるといわれており<sup>21)</sup>、今回もMFH 8例中6例(75.0%)と高率に胆石を合併していた。

術前診断では胆嚢肉腫(MFH)と正診された症例は1例もなく、胆嚢癌の診断が多かった。Magnetic resonance imaging, helical CTなど診断技術の進歩は著しいものがあるが、現時点での術前胆嚢肉腫の確定診断は困難と考えられた。

一般に胆嚢肉腫は胆嚢癌と違い、巨大腫瘍を形成す

るにもかかわらず、黄疸を伴うことが少ないとされており<sup>12)</sup>、そのため発見された時点で他臓器浸潤、遠隔転移など進行している症例が多い<sup>13)</sup>、今回の集計例にも、手術時すでに結腸直接浸潤がみられ、そのため浸潤臓器である結腸合併切除を追加している症例もみられた<sup>6)7)</sup>。

手術施行症例6例中単開腹の1例を除いて腫瘍の切除が施行されているが、その予後は不良であり、自験例を除き術後1年以上の生存例はみられていない。手術療法以外の治療法として、CYVADICなどの化学療法、放射線療法、免疫療法などが考えられるが、胆嚢原発症例に有効な治療法の報告はみられなかった<sup>11)14)</sup>。自験例は術後照射40Gray施行し、術後1年6か月現在再発の兆候はみられず、術後照射が有効であったと考えている。

今後胆嚢腫瘍を疑った場合、積極的に種々の検査を行い、早期発見に努めることが重要であると同時に、手術療法、放射線療法を含む各治療法の適当な組み合わせによる有効な集学的治療法の開発が望まれるところである。

稿を終えるにあたり、病理組織学的検討についてご指導  
いただいた本院病理田中 勲先生に深謝致します。

### 文 献

- 1) Weiss SW, Enzinn FM: Malignant fibrous Histiocytoma—An analysis of 200 cases—. *Cancer* 41: 2250—2266, 1978
- 2) Yasuma T, Yanaka M: Primary sarcoma of the gallbladder—Report of three cases—. *Acta Pathol Jpn* 21: 285—304, 1971
- 3) 本郷 碩, 光武典之, 篠崎卓雄: 胆嚢原発の malignant fibrous histiocytoma. *日消外会誌* 11: 168, 1978
- 4) 遠藤 修, 鈴木亮一, 松井芳子ほか: 原発性胆嚢肉腫(Malignant Fibrous Histiocytoma)の1例. *肝と膵* 3: 405—410, 1982
- 5) 井上敦雄, 高岡愛明, 神田 勤ほか: 肝臓癌に胆嚢癌と胆嚢原発悪性組織球腫が併存した1例. *日消病会誌* 79: 304—305, 1982
- 6) 笹田明徳, 柳川昌弘, 林 悟ほか: 胆嚢原発悪性組織球腫の1例. *日外会誌* 89: 1306—1309, 1988
- 7) 角谷 宏, 山田孝史, 池田 肇ほか: 胆嚢 Malignant Fibrous Histiocytoma の1例. *腹部画像診断* 9: 649—653, 1989
- 8) 坂田慶太, 酒井喜久, 飯田健一ほか: 胆嚢原発悪性線維性組織球腫の1剖検例. *現代医* 33: 549—554, 1991
- 9) 宮川隆平, 安倍龍一, 宮崎 要ほか: 胆嚢 malignant fibrous histiocytoma の1例. *日臨外医会誌* 53: 955—959, 1992
- 10) 桑原竹一郎, 梅田 透: 軟部悪性腫瘍の組織診断. 福間久俊編. *骨・軟部悪性腫瘍*. 南江堂, 東京, 1990, p32—43
- 11) 吉野正曠, 岡崎伸生, 吉田孝宣ほか: 原発性胆嚢肉腫の1例. *肝・胆・膵* 2: 237—241, 1981
- 12) 浅井尚生, 福田健文, 浅沼史樹ほか: 原発性胆嚢肉腫の1例. *臨外* 47: 348—353, 1986
- 13) Klistofferson AO, Domellof L, Ermdin SO et al: Malignant fibrous histiocytoma of the gallbladder: A case report. *J Surg Oncol* 23: 56—59, 1983
- 14) Kearney MM, Soule EH, Ivins JC: Malignant fibrous histiocytoma—A retrospective study of 167 cases—. *Cancer* 45: 167—178, 1980

### A Case of Primary Malignant Fibrous Histiocytoma of the Gallbladder

Kazutsugu Sakamoto, Kiyotaka Yukimoto, Akira Hayashibe, Hajime Tanaka,  
Hideki Kitou, Eiji Taruya, Zensuke Yanagi, Kannji Tokura,  
Kennzou Asada and Junn Takebayashi  
Department of Surgery, Izumi Municipal Hospital

A 74-year-old woman was admitted to our hospital because of intermittent epigastric discomfort. Abdominal ultrasound examination and a CT scan showed that the gallbladder with stones, visualized as an irregular wall thickening, continued directly with a tumor of the anterior section of the right lobe of the liver. Abdominal angiography revealed an encasement and stenosis in the cystic arteries and a tumor stain in the right lobe of the liver. The patient was diagnosed with the gallbladder cancer with direct invasion to the liver, and underwent extended cholecystectomy. Pathological examination led to a diagnosis of malignant fibrous histiocytoma (MFH). MFH originating from the gallbladder is very rare, and only 7 cases have been reported in Japan so far. This is the eighth case in Japan.

**Reprint requests:** Kazutsugu Sakamoto Department of Surgery, Izumi Municipal Hospital  
4-10-10 Hutyuu-cho, Izumi, 594 JAPAN