

症例報告

胆嚢癌肉腫の1例

太田西ノ内病院外科

西蔭 徹郎 山崎 繁 永井 鑑
若山 宏 三浦 則正

症例は69歳の男性。主訴は右季肋間痛。他院のCTにて胆嚢腫瘍を指摘され当院に紹介入院となった。当院の超音波検査では胆嚢底部に径30mmの内部エコー不均一な腫瘍を認めた。胆嚢悪性腫瘍の診断で胆摘、肝床切除郭清術を施行。病変は30×20×25mm大で、胆嚢底部肝床側原発の腫瘍性病変であり、病理組織学的検索にて横紋筋肉腫と腺癌からなる胆嚢癌肉腫と診断された。術後4年9ヵ月経過した現在現発の兆候を認めていない。

Key words: carcinosarcoma of the gallbladder, rhabdomyosarcoma of the gallbladder

はじめに

胆嚢に発生する癌肉腫はきわめてまれである。今回、我々は横紋筋肉腫と腺癌からなる、胆嚢癌肉腫の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：69歳、男性

主訴：右季肋部痛

現病歴：平成4年1月27日、体動時に右季肋部痛が出現。1月29日、近医を受診し精査目的にて入院。胆嚢隆起性病変を指摘され、当院に紹介入院となった。

既往歴：特記すべきことなし。

入院時現症：身長155cm、体重47kg、血圧144/62mmHg、脈拍78/min 貧血、黄疸なし、表在リンパ節を触知せず、胸部理学的所見異常なし、腹部は平坦、軟、肝脾触知せず。

入院時検査成績：血算、血液生化学検査、腫瘍マーカーに異常を認めなかった。

腹部超音波検査：胆嚢底部肝床側に約3cmの低エコーで内部不均一な腫瘍像が認められた。周囲臓器への浸潤は明らかでなかった (Fig. 1)。

腹部CT：単純CTでは胆嚢底部肝床側に、中心低吸収域、周辺高吸収域の腫瘍性病変が認められた (Fig. 2a)。造影CTでは、周辺高吸収域の部分が増強された (Fig. 2b)。

ERCP：胆嚢描出が良好で、壁はほぼスムーズであ

るが、胆嚢底部肝床側に一部陰影欠損を認めた。総胆管、肝内胆管に異常を認めなかった (Fig. 3)。

超音波ガイド下に針生検を行ったが確定診断が得られず、平成4年3月11日、胆嚢の悪性疾患を疑い、胆嚢摘出、肝床切除郭清術を施行した。術中所見にて病変は胆嚢底部肝床側の約3cm大の腫瘍性病変であった。

摘出標本：胆嚢底部肝床側に、約3cm大の病変がみられた。中心部は潰瘍壊死を形成しており、その辺縁部で粘膜下腫瘍様の発育を示していた。周囲に粘膜の一部、発赤、びらんが認められた (Fig. 4)。

Fig. 1 Abdominal ultrasonography demonstrates the lowechoic mass, 3cm in size, in the fundus of the gallbladder.

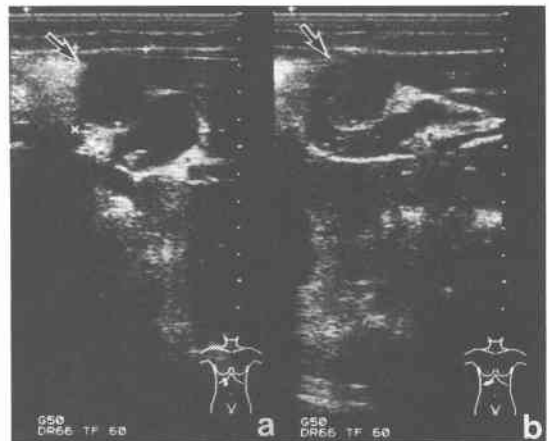


Fig. 2 The plain CT (a) demonstrates the mass in the fundus of the gallbladder which is low density in center and high density around low density site. The site of high density is enhanced (b).

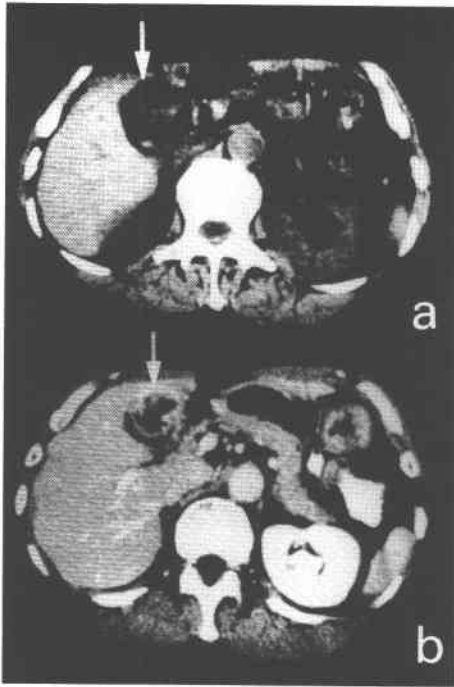
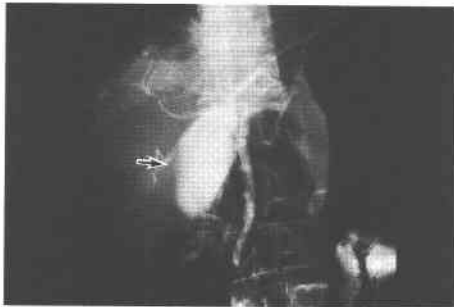


Fig. 3 ERCP revealed the liver bed side of the fundus of the gallbladder is defected slightly.



病理組織所見 (胆道癌取扱い規約¹⁾に準拠) : HE 染色では、発赤、びらんを示した部分は、粘膜 (m) から固有筋層 (pm) 表層に浸潤する高分化型腺癌の像であった (Fig. 5a)。粘膜下腫瘍様の部分は、丸く、多形性に富んだ細胞で、横紋筋肉腫と肉腫様増殖を果たした癌腫との鑑別が困難であった (Fig. 5b)。この肉腫様の部分の深達度は、肝床側で漿膜下層 (SS) にと

Fig. 4 The lesion like submucosal tumor in the liver bed side of the fundus of the gallbladder is necrotic in center. A part of mucosa around it is reddish and erosive.

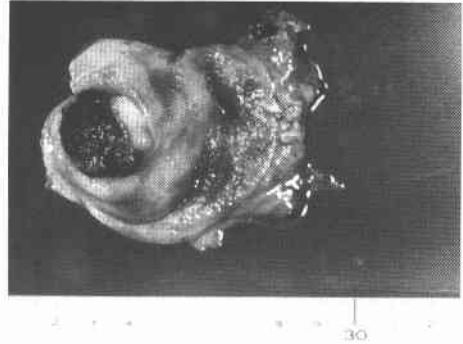
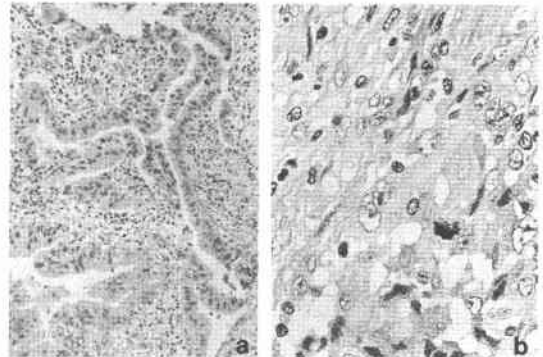


Fig. 5 Microscopic features of HE staining a ; carcinoma/Well differentiated adenocarcinoma ($\times 100$). b ; sarcoma/pleomorphic cell is observed and the discrimination between rhabdomyosarcoma and carcinoma with sarcomatous growth is difficult ($\times 400$).

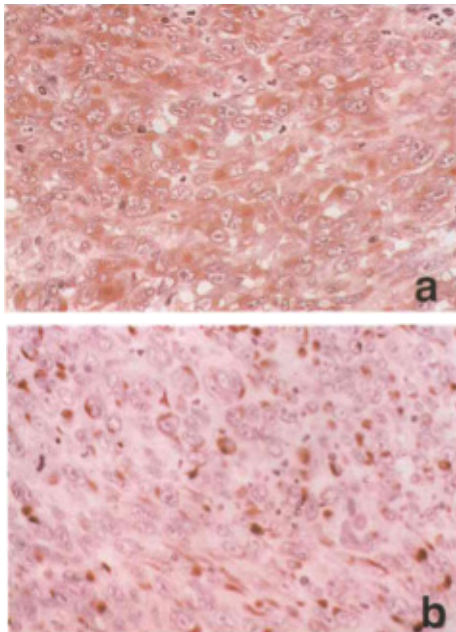


どまっていた。リンパ節転移は認められなかった。

つぎに特殊染色では、横紋筋を特異的に染めるといわれるミオグロビン染色で胞体が褐色に染まっており、肉腫部分は横紋筋肉腫であることが強く示唆された (Fig. 6a)。間葉系を染めるビメンチン染色では、肉腫部分のみ褐色に染色され、癌腫は染色されなかった (Fig. 6b)。その他、上皮性組織を染める CEA 染色では、癌腫の部分のみ染まり、肉腫は染色されず、平滑筋を主に染める免疫組織化学的染色では、肉腫の部分は染色されなかった。

以上の病理組織所見より、高分化型腺癌と横紋筋肉腫からなる、胆嚢癌肉腫と診断された。

Fig. 6 a; myoglobin staining/Sarcomatous cell is stained brown ($\times 200$). b; vimentin staining / Only sarcomatous cell is stained and carcinoma cell isn't ($\times 200$).



術後経過：術後経過良好にて，第20病日に退院。平成8年12月現在，再発の兆候を認めていない。

考 察

腸嚢癌肉腫は検索範囲内では，本邦で22例（自験例を含む）しか報告されていないまれな疾患である^{2)~8)} (Table 1)。外国においても1984年にBornら⁹⁾が18例の胆嚢癌肉腫を報告して以後は数例の報告がみられるのみである。女性に多く，主訴は腹痛が大部分であるが，中には黄疸，腹部腫瘤を訴えるものもある。転移様式は胆嚢癌と同様，肝転移，肝門部，総胆管周囲へのリンパ節転移が多く報告されている。治療は本症例のような手術療法がほとんどであり，化学療法の奏効例の報告はみられていない。

術前診断に関しては過去の症例において，正診を得たものはほとんどない。このような術前診断の困難さは，胆嚢の癌肉腫といった概念がほとんど浸透していないうえに，胆嚢癌肉腫が，胆嚢癌と異なった特徴的な所見を特に有さないことから当然であろう。水野ら⁷⁾が，胆嚢癌肉腫は胆嚢内腔に突出するポリープ様の形態をとるものが多い，と報告しているのは注目すべきであるが，その他，巨大腫瘤³⁾，胆嚢壁に沿っての

浸潤²⁾，本症例のように部分的に粘膜下腫瘍様の発育を示すものもあり，いずれも胆嚢癌，胆嚢肉腫と一線を画す所見ではない。いずれにせよ，術前に胆嚢の悪性疾患を疑った場合，多少なりとも癌肉腫を念頭におかねばならない。癌肉腫の病理組織学的検討で常に問題となるのが，「真の癌肉腫」と「いわゆる癌肉腫」の鑑別である。つまり，骨，軟骨，横紋筋など，分化した間葉系を肉腫にもつ「真の癌肉腫」と，紡錘形細胞からなり，一見，肉腫に見えるが，癌腫と肉腫の間に移行部をもち，癌腫が肉腫様増殖を果たしたと思われる「いわゆる癌肉腫」との鑑別である。単純に，紡錘形細胞からなる肉腫様成分をもつものを「いわゆる癌肉腫」と判断すると，本邦の胆嚢癌肉腫22例中少なくとも8例は，「いわゆる癌肉腫」であると思われる。しかし，胆嚢癌肉腫に対する特殊染色，電子顕微鏡による分析が徐々に進むにつれ，両者を安易に分析することの危険性が認識され始めた。松浦ら⁹⁾が報告した症例は，以前に井上ら³⁾が，癌腫と肉腫の間に明瞭な移行像をもつ「いわゆる癌肉腫」として報告した症例を，後の酵素抗体法による組織学的再検討の結果，横紋筋芽細胞へ分化した細胞を肉腫成分にもつ「真の癌肉腫」と診断した症例である。このことは，これまで「いわゆる癌肉腫」と報告されているものの中にも「真の癌肉腫」が存在する可能性を示唆するものである。また，水野ら⁷⁾は，癌腫と肉腫の間に明らかな移行像を認めない症例を，酵素抗体法，電子顕微鏡の両者による分析により「いわゆる癌肉腫」である可能性を説いている。つまり，癌肉腫の鑑別にいまだ一定の見解が得られていないのが現状であろう。

本症例は，電子顕微鏡による検索は行っていないが，ミオグロビン染色に陽性であること，癌腫と肉腫の間に明らかな移行像がないことなどより，「真の癌肉腫」である可能性が高いと考えられる。今後癌肉腫の鑑別に対する一定の見解を得るためにも，症例の集積が待たれるとともに，特殊染色，あるいは電子顕微鏡による分析の必要性が高いといえよう。本症例は，男性であり，病変は横紋筋肉腫成分をもち，一部に粘膜下腫瘍様増殖を示すという点で，貴重な症例と考えられる。予後が悪く，ほとんどの症例が術後1年以内に死亡するといわれる胆嚢癌肉腫であるが，本症例は術後約4年9か月を経過した平成8年12月現在再発の兆候を認めていない。

Table 1 Reported cases of carcinosarcoma of the gallbladder in Japanes literature

	author	year	age sex	chief complaint	preoperative diagnosis	pathology	prognosis
1	Yamagiwa	1971	83 F	icterus	?	papillotubular adenoca. leiomyosarcoma	11days
2	Takashima	1973	70 F	rt. hypochondralgia	cholecystolithiasis hydrocholecystis	papillotubular adenoca. spindle cell sarcoma	?
3	Ozaki	1974	73 F	rt. hypochondralgia abdominal mass	cholecystic sarcoma	papillotubular adeoca. leiomyosarcoma	9months
4	Ogura	1977	55 F	rt. hypochondralgia	?	adenocarcinoma sarcoma	?
5	Matushita	1980	70 M	epigastralgia	?	adenocarcinoma spindle cell sa.	?
6	Takahashi	1981	54 F	rt. hypochondralgia	?	adeno-squamous cell ca. chondrosarcoma	death
7	Yamagiwa	1982	78 F	rt. hypochondralgia	?	papillotubular adenoca. spindle cell sarcoma	?
8	Zeisho	1983	64 M	epigastralgia melena	hemangiosarcoma	adenoca. rhabdomyo- osteo-chondrosarcoma	1month
9	Miyamoto	1983	62 F	rt. hypochondralgia	cholecystic cancer cholecystolithiasis	adenocarcinoma osteosarcoma	3months
10	Nomi	1984	58 F	epigastralgia icterus	cholecystic cancer	so-called carcinosarcoma	?
11	Inoshita	1986	53 M	icterus	choledocholithiasis	adenoca. chondro-osteo- rhabdomyosarcoma	17months
12	In	1986	71 F	abdominal mass	?	adenocarcinoma rhabdomyosarcoma	?
13	Hasegawa	1987	61 M	rt. hypochondralgia	cholecystic tumor	tubular adenoca. spindle cell sarcoma	6months
14	Takahashi	1987	67 F	epigastralgia	cholecystic cancer	adenocarcinoma spindle cell sarcoma	?
15	Kawano	1987	58 F	epigastralgia	cholecystic tumor	adenocarcinoma rhabdomyosarcoma	?
16	Yamamoto	1987	60 F	rt. hypochondral discomfort	cholecystic cancer	tubular adenoca. chondrosarcoma	?
17	Matsuura	1989	78 F	rt. hypochondralgia	cholecystic cancer	adeno-squamous cell ca. rhabdomyosarcoma	7months
18	Fukui	1989	58 F	rt. hypochondralgia icterus	choledocholithiasis	adenocarcinoma liposarcoma	4months
19	Mizuno	1990	79 M	rt. hypochondralgia	cholecystic cancer	adenocarcinoma spindle cell sarcoma	6months
20	Imai	1990	55 F	?	cholecystic tumor	squamous cell carcinoma spindle cell sarcoma	?
21	Nishihara	1990	50 M	epigastralgia	cholecystolithiasis chronic cholecystitis	adenocarcinoma chondrosarcoma	11months
22	Nishikage	1995	69 M	rt. hypochondralgia	cholecystic tumor	adenocarcinoma rhabdomyosarcoma	alive for 4 yeafs and 9 months

文 献

- 1) 日本胆道外科研究会編：外科・病理. 胆道癌取り扱い規約. 第3版. 金原出版, 東京, 1993
- 2) 宮本祐一, 森松 稔, 竹内 稔ほか：胆のう原発癌肉腫の1例. 臨病理 1:1065-1069, 1983
- 3) 井上純一, 野村正博, 中西信輔ほか：AFPが著増し, 肝転移巣の石灰化を認めたいわゆる胆嚢癌肉腫の1症例. 肝・胆・膵 12:988-993, 1986
- 4) 長谷川浩, 高田忠敬, 安田秀喜ほか：巨大な腫瘤を形成した胆嚢癌肉腫の1切除例. 日消病会誌 84:1690-1694, 1987
- 5) 松浦博夫, 平本忠憲, 井上純一ほか：胆嚢癌肉腫の
一部検例. 広島病医誌 5:102-109, 1989
- 6) 福井政道, 兵頭春夫, 高橋勝則ほか：総胆管結石症として手術された胆嚢癌肉腫の1症例. 獨協医学会誌 4:277-284, 1989
- 7) 水野 清, 横地 真, 池田和雄ほか：急性胆嚢炎にて発症した胆嚢癌肉腫の1例. 胆道 4:499-504, 1990
- 8) 西原修造, 洲脇謹一郎, 森谷広樹ほか：胆嚢癌肉腫の1例. 胆と膵 11:635-640, 1990
- 9) Born MW, Ramey WG, Ryan SF et al: Carcinosarcoma and carcinoma of the Gallbladder. Cancer 53:2171-2177, 1984

A Case of Carcinosarcoma of the Gallbladder

Tetsuro Nishikage, Shigeru Yamazaki, Kagami Nagai,
Hiroshi Wakayama and Norimasa Miura
Department of Surgery, Ota Nishinouchi Hospital

A 69-year-old man, in whom a mass of the gallbladder had been detected by computed tomography in another hospital, was admitted to our hospital because of right hypochondralgia. Abdominal ultrasonography revealed a heteroechoic mass of the fundus of the gallbladder, 30 mm in size. An extended cholecystectomy was performed under the diagnosis of a malignant tumor of the gallbladder and we found a mass in the fundus of the gallbladder, 30 × 20 × 25 mm in size. Histological examination of the resected specimen revealed that it was carcinosarcoma of the gallbladder consisting of rhabdomyosarcoma and adenocarcinoma.

Reprint requests: Tetsuro Nishikage First Department of Surgery, Tokyo Medical and Dental University
1-5-45 Yushima, Bunkyo-ku, Tokyo, 113 JAPAN