

肝内胆管の圧排を来した胆管付属腺由来, 肝門部小肝嚢胞の1例

鹿浜橋病院外科¹⁾, 昭和大学医学部第2外科²⁾

石原 明¹⁾ 普光江嘉広¹⁾ 小泉 和雄¹⁾

村上 雅彦²⁾ 草野 満夫²⁾

症例は61歳の男性。右季肋部痛, 嘔吐にて来院。腹部超音波検査・CTで肝の内側区域に2cmの嚢胞と末梢外側区域胆管枝の拡張を認め, 精査入院となった。入院時に黄疸はないが, 肝胆道系酵素の上昇がみられ, ERCでは左肝内胆管の圧排狭窄像かつ末梢側肝内胆管枝の拡張を認めた。画像診断上は肝嚢胞による圧排を考えたが, 悪性疾患も否定できず手術となった。開腹所見では肝門部に左肝内胆管を圧排する嚢胞性病変を認め, 摘出術となった。摘出した腫瘤は病理学的には単純性肝嚢胞と診断された。本症例の嚢胞は肝内の大型胆管に存在する胆管付属腺の拡張と考えられ, グリソン鞘内で发育を来したゆえに1.7cmの嚢胞でも胆管を圧排したと考えられた。肝門部における単純性肝嚢胞では, 胆管付属腺の拡張によるものにも注目する必要があると考えられた。

Key words: hilar cyst, peribiliary gland, compression of the intrahepatic bile duct

はじめに

肝嚢胞は, 多くは無症状で偶然画像診断により発見される良性疾患である。診断は比較的容易であり, 無症状の場合経過観察されるが, 上腹部痛や腹部膨満感などの症状を有する場合は治療の対象となる。巨大嚢胞の場合, 嚢胞が胆管を圧排し胆管炎・黄疸を来することがあるが, 本例のように1.7cmの小嚢胞が胆管を圧排することは極めてまれであり, 国内外の報告例を検討し, 文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 61歳, 男性

主訴: 右季肋部痛, 嘔吐

家族歴: 特記事項なし。

既往歴: 30歳時に脊椎カリエスの手術(輸血歴あり)。45歳, 48歳時に黄疸, 腹水出現し肝硬変と診断され内科治療。

飲酒歴: 24歳より30年間日本酒4合/日。

現病歴: 平成7年9月, 上記主訴にて来院し精査目的で入院となった。

入院時現症: 身長165cm, 体重60kg。栄養状態良好。貧血, 黄疸無し。腹部は平坦軟で腹水, 腫瘤は認めず, 右季肋部に軽度圧痛がみられた。

入院時血液生化学検査: 白血球数, 肝・胆道系酵素,

ビリルビン値の上昇を認めた (Table 1)。

腹部超音波検査: 肝内側区域 (以下, S4) に境界明瞭な径約2cmの hypoechoic lesion を認め, それより末梢の内側区域, 外側区域胆管枝の拡張を認めた (Fig. 1)。

腹部CT検査: 腹部超音波検査と同様に左肝内胆管の拡張を認め, S4に径2cmの low density area を認めた。造影CTで病変部は造影されなかった (Fig. 2)。

腹部MRI検査: 肝門部の腫瘤および末梢の外側区域胆管枝は T2強調画像で high intensity であった。

Endoscopic retrograde cholangiography (以下, ERCと略記) 検査: 下外側区域枝 (以下, B3) の圧排狭窄像および末梢枝の拡張を認めた。また上外側区域枝 (以下, B2), 内側区域枝 (以下, B4) の連珠状拡張を認めた (Fig. 3)。

腹部血管造影検査: 異常は認められなかった。

胆汁細胞診: 超音波ガイド下に拡張胆管内より得られた胆汁細胞診では class III であった。なお, 腫瘤への直接穿刺術は悪性細胞の腹腔内散布の恐れがあるため, 施行しなかった。

以上, 画像診断上は肝嚢胞による左肝内胆管の圧排狭窄を考えたが, 嚢胞径が小さすぎることから限局性の肝内胆管癌も否定できず, 開腹手術となった。

手術所見: 肝臓は全体的に軽度の凹凸不整を呈し, ところどころに網目状の白色紋理を認める肝硬変の所見であった。総胆管から肝門部に向け左肝管を露出し

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	9,800 / μ l	Ch. E	1,982 IU/l
RBC	421×10^4 / μ l	Amylase	175 IU/l
Hb	12.7 g/dl	FBS	139 mg/dl
Ht	38.2 %	T. Chol	115 mg/dl
Plt	9.6×10^4 / μ l	BUN	8.3 mg/dl
T.P	7.9 g/dl	Crea	1.0 mg/dl
Alb	3.8 g/dl	Na	142 mEq/l
T. Bil	1.5 mg/dl	K	2.7 mEq/l
D. Bil	0.7 mg/dl	Ci	89 mEq/l
GOT	155 IU/l	CRP	0.1 mg/dl
GPT	85 IU/l	CA19-9	55.1 U/ml
ALP	325 IU/l	CEA	4.0 ng/ml
LDH	549 IU/l	HBs Ag	(-)
γ -GTP	68 IU/l	HCV Ab	(+)

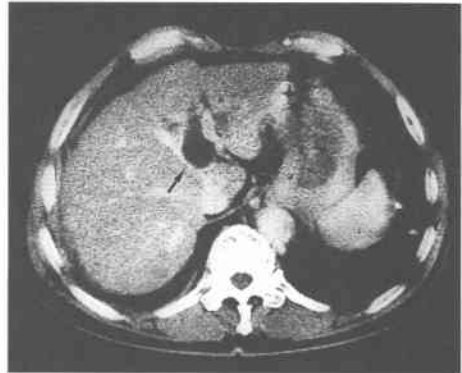
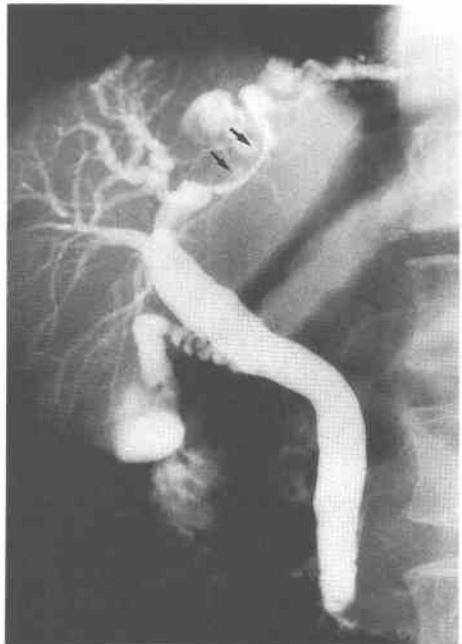
Fig. 1 Ultrasonography shows a hypoechoic lesion measuring 2.0cm in S4 (arrow) and dilatation of the peripheral bile ducts (B2, B3).

たところ、B3を圧排する腫瘤を認めた(**Fig. 4**)。腫瘤の周囲組織との癒着は軽度であり、容易に摘出しえた。

摘出標本：表面平滑・弾性軟な径1.7cmの球形嚢胞性腫瘤であり壁は薄く、内容液は無色透明の漿液であった。

病理組織学的所見：嚢胞壁に悪性像はなく、胆管付属腺由来の肝嚢胞と診断された。また嚢胞壁に接して種々の顕微鏡レベルの拡張を示す肝内胆管付属腺が散見された(**Fig. 5**)。

術後経過：術後経過は順調であり、血液生化学検査にて肝機能の改善も認められたため退院となった。術後3か月目に施行したERCでは、狭窄部が依然として存在するものの改善傾向がみられた。

Fig. 2 Enhanced CT shows a low density area which is not enhanced in S4 (arrow) and dilated left intrahepatic bile ducts are seen.**Fig. 3** Endoscopic retrograde cholangiogram reveals extrinsic compression at B3 (arrow).

考 察

近年の画像機器の普及により、肝の嚢胞性疾患の発見頻度は増加した。Gainesら¹⁾によると超音波検査による肝嚢胞の発見頻度は2.5%であり、女性に多く、右葉に好発し、単発性のものが多い。また嚢胞径では多くが1.1cm~2.0cm(42%)であり、3cm以上のものはまれである。加齢との関係では発見頻度の増加はある

Fig. 4 Intraoperative findings. A solitary cyst compressed B3. Cystectomy was carried out completely. LHD: left hepatic duct



ものの、嚢胞径の増大との関連はないとされている。臨床的には Henson ら²⁾の分類が一般的であり、その中の孤立性非寄生虫性肝嚢胞の発生機転としては、(1)胆管の閉塞または狭窄による胆汁の貯溜が原因となる貯溜性嚢胞説³⁾、(2)胆管の迷芽に基づく先天性組織形成異常説⁴⁾、(3)後天的に胆管の増殖が始まり、次第に嚢腫状に拡張して、多発性多房性嚢胞となり、徐々に隔壁を失って単純性嚢胞となる真性腫瘍説⁵⁾などが考えられている。臨床的にはほとんどが無症状で治療を必要とせず、予後は一般に良好である。時として嚢胞の増大により腹部膨満感、腹痛、呼吸困難などの症状を来す例もあるが、超音波ガイド下のエタノール・炭酸ガス⁶⁾注入により良好な成績が得られている。その他破裂⁷⁾、出血、感染、癌化⁸⁾などで、外科的治療を必要とすることもある。

しかしながら本例のように孤立性嚢胞が胆管を圧排することは極めてまれであり、Terada ら⁹⁾によると1950年に Caravati が最初に報告して以来、調べ上げた限りでは自験例を含め21例の報告^{10)~14)}をみるに過ぎない (Table 2)。特徴としては嚢胞の大きさの平均が13cm と比較的大きいことである。これらの胆管圧排部位の多くはS4, 5と肝門部近傍に集中しており、このため総肝管や総胆管レベルで圧排が起こり、黄疸が出現したと考えられた。治療的には嚢胞内容の吸引、嚢胞摘出が行われれば、胆管の圧排所見や黄疸は速やかに改善される。この理由として Cappell ら¹²⁾は、肝嚢胞自体の発育は遅く、周囲組織に対して炎症性・癒着性には浸潤を来さないため、外圧による圧排にとどまると述べている。しかし本例のように大きさが1.7cm と極端に小さい嚢胞においては、外圧による圧排のみで胆管閉塞を来すとは考えにくいと思われた。

Fig. 5 Microscopic findings. Various sizes of the periductal glands' dilatation are seen around the wall of the cyst. (H.E. stain, ×100)



そこで詳細な病理組織学的検討を行ったところ、嚢胞壁の近傍に大小の胆管付属腺が存在することが確認され、中沼ら¹⁵⁾のいう肝門部多発性肝嚢胞に相当するものと考えられた。これは肝門部から肝内の大型グリソン鞘内に肝実質に接するように見られる多発性の単房性嚢胞であり、胆管付属腺の拡張が原因であると考えられている。寺田ら¹⁶⁾は1,000例の剖検肝を検索したところ、202例において肝内胆管付属腺の嚢胞状拡張を認め、なかでも門脈圧亢進肝・門脈血栓・成人型嚢胞性疾患・胆管付属腺炎などに高頻度に見られ、門脈血行障害が付属腺の拡張を引き起こしていると報告した。これら嚢胞状に拡張した付属腺はまれに胆管を圧排することがあり、Wanless ら¹⁷⁾も付属腺の嚢胞状拡張が胆管を閉塞し、閉塞性黄疸を呈した2剖検例を報告している。本症例も長年の肝硬変による肝内の循環障害により付属腺導管の閉塞を来し、2次的に付属腺が拡張 (発生機転としては先で述べた貯溜性嚢胞説と一致) していき、加えて線維性の強い索状物であるグリソン鞘内での嚢胞形成から、1.7cm の大きさの嚢胞でも胆管を圧排したものと推測された。

今後肝門部において、単発あるいは多発の嚢胞で胆

Table 2 Findings in 20 cases with a solitary non-parasitic cyst complicated by biliary compression

Reference	Patient		Size (cm)	Chief complaints	Location	Treatment
	Age	Sex				
Caravati ⁹⁾	(1950)	33 M	—	J	S4, 5	L(marsupialization)
Hudson ⁹⁾	(1963)	55 F	25	J+ab. pain	S3, 4, 5	L(drainage)
Dardik ⁹⁾	(1964)	69 F	15	ab. pain	S5	L(dissection)
Sacks ⁹⁾	(1967)	81 M	20	J	S4	A
Santman ⁹⁾	(1977)	61 F	15	J	S4	L(partial removed)
Machell ⁹⁾	(1978)	67 F	—	J	S3, 4, 5	L(catheterization)
Honma ¹⁰⁾	(1980)	65 F	12	J	S4, 5	L(cystjejunostomy)
Morin ⁹⁾	(1980)	80 F	17	J	S4, 5	A
Muto ¹¹⁾	(1981)	40 M	10	J	S5, 6	L(cystectomy)
Matsubara ⁹⁾	(1982)	80 M	7	J	S4	L(deroofting)
Fernandez ⁹⁾	(1984)	61 F	30	J+ab. pain	S3, 4, 5	L(cystectomy)
Clinkscales ⁹⁾	(1985)	80 M	8	J	S4	A
Maehara ⁹⁾	(1986)	40 F	5	J	S4	L(cystectomy)
Cappell ¹²⁾	(1988)	44 F	12	ab. pain	S4, 5	A
Komiyama ⁹⁾	(1989)	90 M	17	J	S4	A+ethanol injection
Sano ⁹⁾	(1990)	69 M	10	J	S4	A+ethanol injection
Spivey ⁹⁾	(1990)	73 M	11	discomfort	S4, 5	L(unroofing)
Hukutomi ¹³⁾	(1992)	75 F	3	—	S2, 4	A+ethanol injection
Terada ⁹⁾	(1993)	71 F	12	J	S3, 4, 5	L(extirpation)
Schwed ¹⁴⁾	(1993)	70 F	11	J+ab. pain	S2, 3, 4	L(unroofing)
Present case	(1996)	61 M	1.7	ab. pain+ vomiting	S4	L(cystectomy)

Age: years old, Sex: M-male, F-female, Size: size of each cyst, Chief complaints: J-jaundice, ab. pain-abdominal pain, Location: segment by Couinaud's category, Treatment: L-laparotomy, A-percutaneous aspiration

管を圧排狭窄する症例では、付属腺の拡張に起因するものも考慮する必要があると思われた。

稿を終えるにあたり、病理学的見地から御教授・御校閲をいただいた金沢大学医学部第2病理学教室の中沼安二教授に深謝いたします。

文 献

- 1) Gaines PA, Sampson MA: The prevalence and characterization of simple hepatic cysts by ultrasound examination. *Br J Radiol* 62: 335-337, 1989
- 2) Henson SW Jr, Gray HK, Dockerty MR: Benign tumors of the liver. III. Solitary cysts. *Surg Gynecol Obstet* 103: 327-336, 1956
- 3) Maes U: Non-parasitic cysts of the liver. *Am*

J Surg 38: 68-69, 1924

- 4) Virchow R, Koerte W: Verhandlungen arztlicher Gesellschaften. *Berliner Klin Wchnschr* 29: 104-107, 1892
- 5) Clagett OT, Hawkins WJ: Cystic disease of the liver. *Ann Surg* 123: 111-118, 1946
- 6) 稲吉 厚, 森山周二, 田中秀明ほか: 肝嚢胞に対するエコーガイド下穿刺によるエタノール注入療法の評価と炭酸ガス注入療法の検討. *日臨外医学会誌* 55: 31-37, 1994
- 7) Ayyash K, Haddad J: Spontaneous rupture of solitary nonparasitic cyst of the liver. *Acta Chir Scand* 154: 241-243, 1988
- 8) 平林雅彦, 佐野千秋, 魚返英寛ほか: 経過観察中に癌化したと考えられた肝嚢胞腺癌の1例—本邦報

- 告例23例の文献的考察—。消外 11:1401-1406, 1988
- 9) Terada N, Shimizu T, Imai Y et al: Benign, nonparasitic hepatic cyst causing obstructive jaundice. Intern Med 32: 857-860, 1993
- 10) 本間憲治, 清水武昭, 村山裕一ほか: 黄疸を主訴とした非寄生虫性肝のう胞の1治験例。外科診療 22: 89-92, 1980
- 11) 武藤 寛, 佐々木襄, 川口正晴ほか: 高度閉塞性黄疸を主訴とした肝門部孤立性肝嚢胞の1治験例。広島医 34: 931-935, 1981
- 12) Cappell MS: Obstructive jaundice from benign, nonparasitic hepatic cysts: Identification of risk factors and percutaneous aspiration for diagnosis and treatment. Am J Gastroenterol 83: 93-96, 1988
- 13) 福富崇能, 四宮幸子, 岩本裕昭ほか: 肝内胆管拡張を伴った単純性肝嚢胞の1例。福岡医誌 83: 134-138, 1992
- 14) Schwed DA, Edoga JK, Stein LB et al: Biliary obstruction due to spontaneous hemorrhage into benign hepatic cyst. J Clin Gastroenterol 16: 84-86, 1993
- 15) 中沼安二, 木田哲二, 佐々木素子ほか: 肝嚢胞性疾患の病理学的分類。腹部画像診断 12: 871-877, 1992
- 16) 寺田忠史, 石田文生, 中沼安二: 肝内胆管付属腺とその病理。病理と臨 9: 1422-1432, 1991
- 17) Wanless IR, Zahradnik J, Heathcote EJ: Hepatic cysts of periductal gland origin presenting as obstructive jaundice. Gastroenterology 93: 894-898, 1987

A Case of a Small Hilar Cyst Derived from the Peribiliary Gland with Compression of the Intrahepatic Bile Duct

Akira Ishihara*, Yoshihiro Hukohe*, Kazuo Koizumi*,
Masahiko Murakami** and Mitsuo Kusano**

Department of Surgery, Shikahamabashi Hospital*

Second Department of Surgery, Showa University, School of Medicine**

We report a rare case of a small hilar cyst derived from the peribiliary gland. A 61-year-old man was admitted to our hospital because of right hypochondralgia and vomiting. Abdominal US and CT showed a cystic lesion 2 cm in diameter in the medial segment of the liver and dilatation of the peripheral bile ducts in the lateral segment. Laparotomy was performed because endoscopic retrograde cholangiography revealed compression and stricture of the left intrahepatic bile duct. At the operation, a simple liver cyst was found to compress the left intrahepatic bile duct at the liver hilus, and cystectomy was carried out. Histopathologically, this lesion was a hilar cyst derived from the peribiliary gland. When a cystic lesion at the liver hilus is found, a biliary cyst arising from dilatation of the peribiliary gland should be kept in mind for the diagnosis.

Reprint requests: Akira Ishihara Second Department of Surgery, Showa University, School of Medicine
1-5-8 Hatanodai, Shinagawa-ku, Tokyo, 142 JAPAN