肝内結石症に合併した肝の inflammatory pseudotumor の1例

富山市民病院外科

上田 順彦 小西 一朗 広野 禎介

肝内結石症に合併した肝の inflammatory pseudotumor (IPT) の1例を報告した。患者は74歳の女性。主訴は発熱,倦怠感.入院時検査成績では,高度な炎症反応と胆道系酵素の上昇を認めた。腹部超音波検査では,肝内外の胆管内に多数の結石像を認めた。肝外側区域末梢部は,内部に嚢胞部分を含む低エコー域により腫大していた.入院時の造影 CT の動脈優位相では,S3末梢部に内部が多房性嚢胞で周囲がリング状に造影される病変を多数認めた。10日後の動脈 CT では同部の腫大は軽減し,各病変は嚢胞部分の消失により大きさは縮小し,円形の濃染となった。肝内外型肝内結石症および肝膿瘍を疑い,胆管切石および肝外側区域切除術を施行した。S3末梢部には黄白色の充実性腫瘤が多発していた。組織学的にはリンパ球,組織球を主とした炎症性腫瘤が孤立性あるいはグリソン鞘を中心として集簇しており、IPT と診断した。

Key words: inflammatory pseudotumor of the liver, hepatolithiasis

はじめに

肝の inflammatory pseudotumor (以下, IPT) は原因不明の肝内の充実性腫瘤とされており、画像上は肝内胆管癌や悪性腫瘍の肝転移巣との鑑別は必ずしも容易ではない¹⁾²⁾。今回、肝内結石症に合併した肝のIPT 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

患者:74歳,女性 主訴:発熱,倦怠感

既往歴:42歳時胆嚢摘除術を受ける。

家族歴:特記すべきことなし.

現病歴:1997年6月初旬より主訴を認める。6月23日当院内科受診し、腹部超音波検査にて肝内結石症と 診断され加療目的で当科に入院となる。

入院時現症:体温38.3℃,結膜に貧血,黄染なし。 腹部正中に胆摘術の手術瘢痕を認める。腹部は平坦, 軟で圧痛はなく,異常な腫瘤は触知しなかった。

入院時検査成績: 血液一般では貧血なし. WBC 10,100/mm³, ESR 76(1hr)/135(2hr), CRP 17.2mg/dl と高度な炎症反応を認めた. 一般生化学検査では GOT 45IU/l, GPT 44IU/l であるが, ALP 892IU/l, y-GTP 270IU/l と胆道系酵素の上昇を認めた. た

だし Total bilirubin 0.8mg/dl と黄疸はなかった。また腫瘍マーカーのうち CEA, CA19-9, AFP は正常範囲内であった。

腹部超音波検査所見:両葉の肝内胆管および肝外胆管は著明に拡張し、肝内胆管第3次分枝から肝外胆管末端まで多数の結石像を認めた。また肝外側区域末梢部は内部に嚢胞部分を含む低エコー域により腫大していた(Fig. 1)。

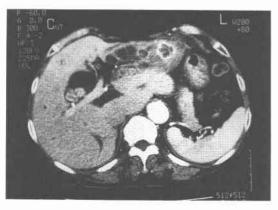
腹部 CT 所見(入院時):両葉の肝内胆管および肝外 胆管は著明に拡張し、内部に多数の結石像を認めた。

Fig. 1 Ultrasonography demonstrates swelling of the periphery of the lateral segment of the liver because of a low echoic area with cystic lesions (arrow).



<1998年5月19日受理>別刷請求先:上田 順彦 〒939-8511 富山市今泉292 富山市民病院外科

Fig. 2 Abdonimal CT with enhancement on arterial dominant phase reveals swelling of the periphery of the lateral segment of the liver and ringed enhanced lesion of 2cm in diameter with a multilocular cystic area at the periphery of S3.



肝のS3末梢部は低吸収域により腫大していた。造影CTの動脈優位相では低濃度のS3末梢部に内部が多房性嚢胞で周囲がリング状に造影される病変を多数認めた。最大の病変は2cm大であるが、小病変が集簇あるいは癒合している像も認められた(Fig. 2)。

経皮経肝胆管ドレナージ(PTCD)所見:拡張した胆管内には末端部から両葉の肝内胆管まで結石が積み上げ式に充満していたが,肝内外とも胆管の絶対的狭窄は認めなかった。またS3末梢部の病変と胆管との交通はなかった(Fig. 3)。なおこの際採取した胆管胆汁の細菌培養ではPseudomonas putida,Pseudomonas aeruginosa,Morganella morganii が検出され,細胞診は class I であった。

入院後 CPZ 1g×2/day を 9 日間投与した結果, WBC および CRP とも正常化した.

腹部 CT 所見(入院10日後):CT arteriography では肝の S3末梢部の腫大は軽減し,最大の嚢胞性病変は中心の嚢胞部分が消失し,1.5cm 大の円形の濃染となった(Fig. 4)。その他の病変も中心の嚢胞部分はほぼ消失し,大きさも縮小した。

腹部血管造影所見: A3は他の分枝に比較して伸展 し枝分かれは乏しいが, 明らかな濃染像はなかった.

以上より肝内外型肝内結石症および肝外側区域の肝 膿瘍を強く疑い手術を施行した。

手術所見:胆管を横切開し肝外胆管および右葉の結石を完全切石した。術中超音波検査で外側区域の胆管内には多数の結石が充満しており内視鏡的な切石は困

Fig. 3 PTCD reveals the dilated bile duct filled with stones from papilla of Vater to bilateral intrahepatic bile ducts.

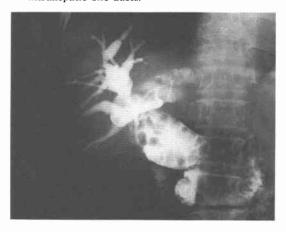


Fig. 4 CT arteriography on the 10th day after admission reveals reduction of the swollen low echoic area. The size of the lesion was reduced to 1.5cm in diameter in consequence of disappearance of cystic area and the lesion was disk-likely enhanced.



難と判断し、肝外側区域切除を施行した。その後、胆管を切離し胆管空腸 Roux-en-Y 吻合で再建した。なお採取した結石はいずれもビリルビンカルシウム石(以下、ビ石)であった。

病理所見:肝外側区域の割面では肝内胆管枝は拡張し,胆管壁は線維性に肥厚し,内部にビ石を含有していた。S3末梢部に黄白色の充実性腫瘤が多発しており,最大のものは15×12mmであった。組織学的には腫瘤は孤立性の結節またはグリソン鞘を中心とした小結節の集簇からなっていた(Fig. 5)。また個々の結節

Fig. 5 The cross section of the resected specimen shows gatherings of nodules with Glisson's capsule (arrow) in the center.

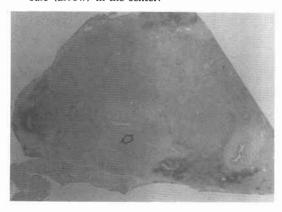
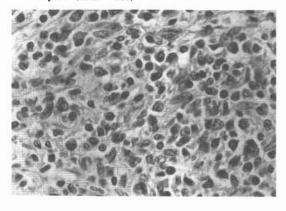


Fig. 6 Pathological finding shows that each nodule consists mainly of lymphocytes and histiocytes. (H.E. ×200)



は膠原線維の弱い band で囲まれていた。各結節はリンパ球、組織球の増生を主とし、形質細胞、血管内皮細胞なども伴った炎症性腫瘤であるが、好中球の浸潤は軽度で膿瘍巣は見られず、悪性所見もなかった(Fig. 6)。なお拡張胆管は通常型肝内結石症でみられる慢性増殖性胆管炎の像で、急性の化膿性変化は認めなかった。また閉塞性静脈炎の所見も認めなかった。

以上の所見より肝内結石症に合併した肝の IPT と診断した。なお自験例の肝内結石症を厚生省特定疾患対策肝内胆管障害研究班の肝内結石症病型分類規約 3 に基づいて分類すると、G(x), Bb, Hb- $(\underline{\text{IE}} \cdot \underline{\text{LR}} \cdot S_0 \cdot D_2 \text{cb} \sim)$, Spx, ② C-kn であった。

術後経過: 術後経過は良好で34日目に退院した。術後6か月たった現在, 残存肝に IPT の再発の徴候はな

41

考 寒

IPT は plasma cell granuloma, xantho-granuloma, post inflammatory tumor とも呼ばれ, 肺での報告が最も多いが, 眼窩, 耳下腺, 胸膜, 肝などでも報告されている¹⁾²⁾. 肝の IPT は1953年に Packら⁴⁾によって報告されて以来, 1996年の蛭田ら²⁾の報告までに国内外で99例が報告されており, 比較的まれな疾患である. ただし肝内結石症に合併した IPT の報告例は著者らが渉猟しえた限りでは見あたらない. 肝のIPT は大部分の症例が肝実質内に孤立性の腫瘤を形成している. 肉眼的には淡黄色調で被膜形成がなく, ゴム様硬の充実性腫瘤のことが多く, 病理学的には肝実質内に線維性結合織の増生と形質細胞, リンパ球, 組織球などの炎症細胞浸潤からなる腫瘤である¹⁾²⁾.

肝のIPTの成因に関しては感染説²⁾⁵⁾。自己免疫 説⁶⁾, 閉塞性静脈炎説⁷⁾などが考えられている。大部分 の症例の臨床経過、検査成績や病理所見から感染説が 最も有力であるが、細菌が証明された症例は少な い1)2)。また感染説でも諸説が考えられている。荒川8)は 肝膿瘍の一部でも器質化しリンパ球、形質細胞を主と する肉芽組織に変わったものを慢性肝膿瘍と定義して いるが、慢性肝膿瘍の plasma cell granuloma の部分 と IPT とはまったく同様の病理所見であることより、 両者は修復時期の相違と推察している。また蛭田ら2) は弱毒性の菌が膿瘍を形成することなく緩徐に炎症反 応を呈しながら肉芽組織性腫瘤を形成した可能性を考 えている。自験例も入院時の CT 所見で認められた内 部の嚢胞部分は経時的に軽快しており、肝膿瘍と診断 した. しかしながら切除標本の病理組織では好中球浸 潤など active な膿瘍巣が全く認められないこと、また 周囲の胆管にも急性の化膿性変化は見られないこと、 さらに通常の肝膿瘍では病変の中心部は既存の構造が 破壊されているが自験例では病変の中心部にグリソン 鞘が残存していることから, 通常見られる肝膿瘍とは 言い難く組織形態所見より IPT と診断した、ただし自 験例の病変はグリソン鞘を中心として小結節が集簇し ていることより、肝内結石を基礎とした胆管炎が関与 している可能性が推測されるが、それに加え起因菌の 種類, allergic な要素, 抗生物質に対する感受性, 宿主 の免疫力など別の要素も加味されて形成されたものと 考えている。また肝内結石症に合併した肝膿瘍は日常 しばしば経験するが、IPT を合併した報告がこれまで にないのは胆管炎にこれらの要素が加味されて形成さ

れる可能性があるからと思われる。今後,IPT と通常の肝膿瘍の臨床所見や病理所見の詳細な検討がなされれば,IPT の成因や IPT と通常の肝膿瘍との関係が明らかになるものと考えられる。

肝の IPT は悪性肝腫瘍との鑑別が困難なことが多い。蛭田ら²⁰の集計によれば画像所見のうち腹部超音 波検査では48例中42例が hypoechoic なパターン,腹部 CT 検査では55例全例が low density area として認められ,造影が行われた41例中27例で腫瘤内部は造影効果を有していたと報告されているが,IPT の診断に特異的な所見ではない。また小林ら⁹⁰は肝の IPT の造影 MRI 所見で造影範囲が造影前の腫瘤の範囲を越えて周囲肝実質にまで及んでいる点を指摘しており,この部は炎症細胞浸潤部と周囲肝実質とが徐々に移行していると考えている。自験例の造影 CT 所見で腫瘤性病変の周囲の低吸収域も同様の状態を示していると考えられる。しかしながらこの所見も炎症性腫瘤の特徴であり悪性肝腫瘍との鑑別には有効であるが,IPTの診断に特異的な所見ではない。

肝の IPT は自験例のように保存的治療により自然 退縮が見られることが報告されている $^{1)2)}$. 悪性肝腫瘍 が否定的で IPT が強く示唆される場合には, 経皮的生 検で組織像を確認したうえで一定期間 $(1\sim 2$ か月) の経過観察を行い,退縮傾向がない場合に限り外科的 切除を選択すべきであると考えられる $^{910)}$. なお自験

例も画像所見より炎症性腫瘤を強く疑っており、肝内 結石がなければ肝切除は不要であったと考えられる.

文 献

- 1) 岩本末治, 牟礼 勉, 角田 司: 肝炎症性偽腫瘍。 領域別症候群 7 肝·胆道系症候群。日臨(別冊): 321-322, 1996
- 蛭田啓之,亀田典章,徳留隆博ほか:早期胃癌に合併した肝 inflammatory pseudotumor。癌の臨42:551-558、1996
- 3) 中山文夫:本邦における肝内結石症の現状。胆と 膵 5:1601-1604,1984
- Pack GT, Baker HW: Total right hepatic lobectomy: report of a case. Ann Surg 138: 253 -258, 1953
- Standiford SB, Sobel H, Dasmahapatra KS: Inflammatory pseudotumor of the liver. J Surg Oncol 40: 283-287, 1989
- Anthony PP, Telesinghe PU: Inflammatory pseudotumor of the liver. J Clin Pathol 39: 761 —768, 1986
- Someren A: Inflammatory pseudotumor of liver with occlusive phlebitis. Am J Clin Pathol 69: 176—181, 1978
- 9) 小林 聡, 荒井和徳, 山城正司ほか:造影 MRI で 特 徴 的 所 見 を 認 め た 肝 inflammatory pseudotumor の 1 例。臨 放線 41:463-466, 1996
- 10) 井上利彦, 伊藤祐司, 柴田泰伸ほか:興味ある CT 所見を呈した肝炎症性偽腫瘍の 1 例。日消病会誌 93:747-752, 1996

A Case of Inflammatory Pseudotumor of the Liver Associated with Hepatolithiasis

Nobuhiko Ueda, Ichiro Konishi and Teisuke Hirono Department of Surgery, Toyama City Hospital

A case of inflammatory pseudotumor of the liver associated with hepatolithiasis is reported. A 74-year-old woman complained of fever and general malaise. Laboratory findings on admission revealed a severe inflammatory reaction and elevation of bile duct enzymes. Abdominal ultrasonography demonstrated many stones in the intra and extra bile ducts. The periphery of the lateral segment of the liver was swollen because of a low echoic area with cystic lesions. Abdonimal CT with enhancement on arterial dominant phase revealed multiple ringed enhanced lesions with a multilocular cystic area at the periphery of S3. CT arteriography on the 10th day after admission revealed reduction of the swollen low echoic area. The size of each lesion was reduced in consequence of disappearance of cystic area and the lesions were disk-likely enhanced. Under the diagnosis of intra- and extrahepatic type hepatolithiasis and a liver abscess, biliary lithotomy and lateral segmentectomy were performed. Multiple yellow-white solid nodules were recognized at the periphery of S3. Pathologically solitary or gatherings of inflammatory nodules with Glisson's capsule in the center consisted mainly of lymphocytes and histiocytes and her codition was diagnosed as IPTs.

Reprint requests: Nobuhiko Ueda Department of Surgery, Toyama City Hospital 292 Imaizumi, Toyama, 939-8511 JAPAN