

胆管細胞癌の転移性鼠径ヘルニア囊腫瘍の1例

茨城県立中央病院・地域がんセンター外科, 同 病理*

志田 大 吉見 富洋 小形 幸代

朝戸 裕二 島崎 二郎* 堀 眞佐男*

鼠径ヘルニアおよび悪性腫瘍は、それぞれが高頻度で見られるにもかかわらず、鼠径ヘルニア内に腫瘍が存在するヘルニア腫瘍は比較的にまれである。今回、われわれは鼠径ヘルニア嚢へ転移した胆管細胞癌の症例を経験したので報告する。症例は72歳の男性。3年来の無痛性の左鼠径部膨隆を主訴に来院した。入院時全身状態は良好であった。左鼠径ヘルニアの診断で、内鼠径ヘルニア修復術を実施した。切除したヘルニア嚢の一部に白色の結節様に肥厚した部位が2か所存在したため、病理組織学的検査を行ったところ、adenocarcinoma in the peritoneal tissue と診断された。その後の全身精査によって、胆管細胞癌の腹膜播種と診断した。本症例はヘルニア腫瘍のなかでヘルニア嚢腫瘍に分類されるが、このような転移性の鼠径ヘルニア嚢腫瘍はまれであり、過去の英文および邦文の文献を検索する限り、原発巣として胆管細胞癌の報告は初めてであった。

緒 言

鼠径ヘルニアおよび悪性腫瘍は、それぞれが高頻度で見られるにも関わらず、鼠径ヘルニア内に腫瘍が存在するヘルニア腫瘍は比較的にまれとされている^{1)~5)}。一般に、ヘルニア腫瘍は腫瘍とヘルニア嚢の解剖学的な位置関係によって、ヘルニア嚢内腫瘍、ヘルニア嚢腫瘍、ヘルニア嚢外腫瘍の3種類に分類される^{1)~5)}。今回、われわれは鼠径ヘルニア手術時に切除したヘルニア嚢を組織学的に調べたことから、胆管細胞癌からの転移性ヘルニア嚢腫瘍との診断に至った1例を経験した。鼠径ヘルニアの転移性ヘルニア嚢腫瘍の報告は、Nicholson ら⁴⁾12例(内2例は悪性中皮腫)、Lowenfels ら⁶⁾および Al-Idrissi ら⁷⁾がそれぞれ4例、Yoell²⁾が3例をまとめて報告した以外は1例報告が散見されるのみで、まれと思われるので、転移性ヘルニア嚢腫瘍について文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：72歳、男性

主訴：左鼠径部膨隆

既往歴：悪性腫瘍の既往なし。

現病歴：1996年頃に左鼠径部の膨隆を自覚、その後膨隆は3年間で徐々に鶏卵大まで増大した。左鼠径ヘルニアに対する手術目的で1999年2月17日当院に入院

した。

入院時現症：全身状態は良好であった。便通は異常なく、体重も著変なかった。左鼠径部は立位で膨隆し、臥位で自然に平坦化した。直腸指診上はダグラス窩に明らかな腫瘍は触知せず、ヘルニア脱出以外は特に異常を認めなかった。

入院時血液検査所見：血清 alkaline phosphatase が455U/l と軽度上昇している以外は異常値を認めなかった。B型肝炎ウイルス、C型肝炎ウイルスは、ともに陰性であった。

以上から、選納可能な左鼠径ヘルニアの診断で2月19日内鼠径ヘルニア修復術(anterior iliopubic tract repair)を行った。術中、明らかな腹水は認めなかった。切除したヘルニア嚢の一部に、白色の結節様の肥厚(米粒様)を2個認めたため、病理標本として提出した。病理組織診断はadenocarcinoma in the peritoneal tissueであった(Fig. 1)。

経過：腹膜播種と考え、原発巣の検索を始めた。上部および下部消化管内視鏡検査に、特記すべき所見はなかった。腹部CT検査で、肝内側区域に径約1.5cmの低吸収域が存在し、その末梢の肝内胆管B2, 3, 4が拡張しているのを認めた(Fig. 2)。胆嚢は腹部CT検査および腹部エコー検査上正常であった。内視鏡的逆行性膵管造影検査で、主膵管に特記すべき所見はなかった。腫瘍マーカーに関しては、alpha-fetoprotein (AFP)およびcarcinoembryonic antigen (CEA)は正

<2000年9月20日受理> 別刷請求先：志田 大
〒112 8688 東京都文京区目白台3 28 6 東京大学
医学部附属病院分院外科

Fig. 1 Microscopic view of section of tumor nodule showed well to moderately differentiated adenocarcinoma (hematoxylen-eosin stained, $\times 80$)

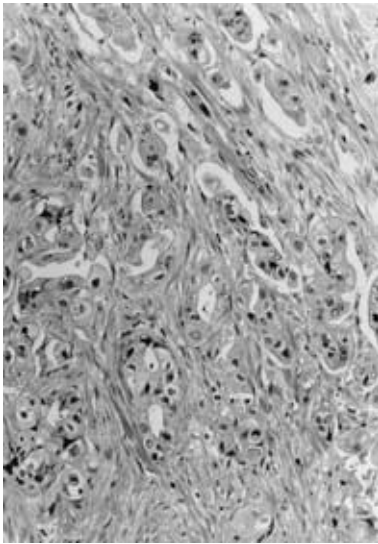
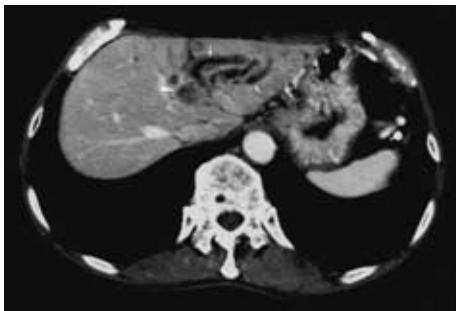


Fig. 2 Abdominal computed tomography showed a space-occupying lesion 1.5cm in diameter (arrow head) in the left medial segment of the liver with dilated peripheral bile ducts (arrow)

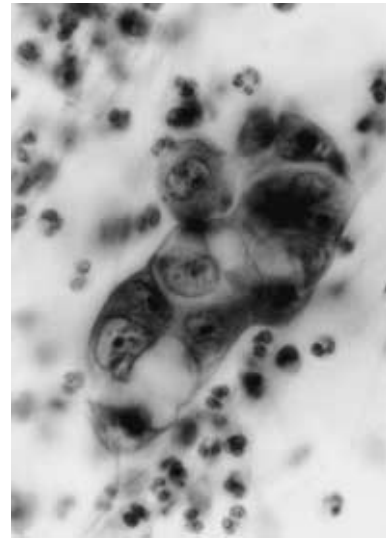


常範囲内であったが, carbohydrate antigen 19 9 (CA 19 9) は2,044U/ml と異常高値を示した.

血清 total bilirubin 0.5mg/dl と黄疸はなかったが, 肝左葉の肝内胆管が著明に拡張しており, 今後の黄疸予防のため, 3月24日経皮経肝胆道ドレナージを実施, pig tail カテーテルを B3に挿入した. カテーテルからの胆道造影では, 左肝管は完全に閉塞し, 総肝管は造影されなかった. カテーテルから採取した胆汁の細胞診は, Class V (adenocarcinoma) であった (Fig. 3).

以上より, 胆管細胞癌と診断した. その後, 原発巣

Fig. 3 A Papanicolaou's stain of the bile showed a cluster of tumor cells indicating adenocarcinoma ($\times 100$)



(肝臓) に対して放射線療法 (計60Gy/2 か月) を実施したが, 効果なく 5 か月後原病死した. 剖検はなされなかった.

考 察

外科医にとって, 鼠径ヘルニアの手術は最も経験の多い手術の1つであり, また悪性腫瘍に関しても数多く診療しているにもかかわらず, 鼠径ヘルニア内に悪性腫瘍が存在するヘルニア腫瘍は比較的まれとされている^{1)~5)}. Yoell²⁾は, 800例のヘルニア手術で切除したヘルニア囊より0.4%以下にあたる3例に悪性腫瘍が発見されたと報告している. また, Nicholson⁴⁾は, 22,816例の鼠径ヘルニア手術のうち, 15例 (0.07%) に転移性のヘルニア腫瘍を認めたと報告している.

一般に, ヘルニア腫瘍は, 腫瘍とヘルニア囊の解剖学的な位置関係から, 大きく3つに分類される^{1)~5)} (1) ヘルニア囊に嵌頓する腫瘍, 例えば, 大腸癌, 膀胱癌, 虫垂癌や大網転移性病変 (2) ヘルニア囊そのものを直接含む腫瘍, 例えば, 悪性中皮腫や他の腫瘍の腹膜転移 (3) ヘルニア囊の外側に位置しヘルニアのように突出する腫瘍, 例えば, 脂肪腫, 脂肪肉腫やリンパ節転移. (1)はヘルニア囊内腫瘍 (intrasaccular tumors), (2)はヘルニア囊腫瘍 (saccular tumors), (3)はヘルニア囊外腫瘍 (extrasaccular tumors) と分類される. われわれの経験した症例は, ヘルニア囊腫瘍であった.

Table 1 Clinical findings of metastatic saccular tumors of inguinal herniae

first author Ref.	year	age (year)	sex	reducibility	duration of herniation	other symptoms or past history	site of primary tumor	survival (month)
Yamada ⁹	1988	46	M	unknown	unknown	nothing	appendix	2(alive)
Dixon ¹⁰	1988	66	M	unknown	unknown	chronic alcoholism	Meckel 's diverticulum (carcinoid tumor)	27(alive)
Imai ¹¹	1988	53	M	reducible	1 month	slight abdominal dull pain	appendix	30(alive)
Yamamoto ¹²	1989	62	M	reducible	1 month	slight abdominal distention	appendix	28(alive)
Knecht ¹³	1990	29	M	irreducible	several days	post operation of malignant thymoma	thymus (thymoma)	unknown
Kumazawa ¹⁴	1991	61	M	irreducible	several months	slightly wasted away fecal occult blood test(+)	colon	18(alive)
Al-Idrissi ⁷	1991	45	M	reducible	2 years	colon cancer	colon	unknown
		60	M	irreducible	3 years	anemia	stomach	unknown
		29	F	irreducible	8 months		unknown (carcinoid)	unknown
Norman ¹⁵	1992	55	M	irreducible	6 weeks	anorexia, weight loss low back pain	pancreas	unknown
		68	M	irreducible	3 weeks	nausea, vomiting increasing abdominal girth	kidney	unknown
Nicholson ⁴	1992	10 patients 49 ~ 75 6M, 4F					2 appendix 3 ovary 2 pancreas 1 rectum 2 unknown	37 ~ 228 6 20 234 2 7 7 4 7(alive)
Plaxe ¹⁶	1993	56	F	unknown	unknown	unknown	ovary	unknown
Masuko ¹⁷	1995	68	M	reducible	1 month	post operation of pancreatic cancer	pancreas	23
Matsuda ¹⁸	1996	55	M	reducible	7 days	nothing	appendix	36(alive)
Ben-Hur ¹⁹	1996	65	F	irreducible	unknown	post operation of ovarian cancer	ovary	60(alive)
Tanaka ²⁰	1997	73	M	unknown	1 month	abdominal pain	appendix	unknown
Le Clair ²¹	1997	14	M	irreducible	1 year	abdominal pain vomiting	colon	unknown
Edwards ²²	1998	38	M	unknown	over the previous year	abdominal pain	appendix	2(alive)
Iguchi ²³	1999	74	M	irreducible	unknown	abdominal pain	appendix	21(alive)
Matsumoto ⁵	2000	67	M	irreducible	5 month	weight loss	colon	3
Present case	2000	72	M	reducible	3 years	nothing	liver(intrahepatic bile duct)	5

ヘルニア嚢腫瘍の成因として, Roslyn ら³⁾は, 重力の多大なる影響の他に, ヘルニア脱出に伴うヘルニア嚢の(慢性的な)炎症のため同部位に局所的に播種が起りやすいとの興味深い推論をしている。近年, 腹膜播種の基礎研究として, 米村⁸⁾は, 癌細胞の腹膜への転移にはインテグリン等の接着因子が必要であり, それらの発現には炎症などによって誘導されるサイトカインが強く関与していると報告しているが, これは Roslyn ら³⁾の推論を支持する報告である。

過去15年の英文および邦文の文献上, 転移性の鼠径ヘルニア嚢腫瘍は30例報告されている^{4, 5, 7, 8, 9, 10, 11, 12, 13, 14, 15, 16, 17, 18, 19, 20, 21, 22, 23)} (Table

1)。なお, 悪性中皮腫及び腹膜原発漿液性乳頭腺癌は, 腹膜が原発部位であることから今回の集計に含めなかった。また, 虫垂や卵巣原発の腹膜偽粘液腫は, 腹膜偽粘液腫を低悪性度の腹膜播種と考え, 集計に含めた。実際には, 報告されていない例や病理組織学的検査をしないことにより見落しをしている例があり, より多くの症例が存在すると考えられる。自験例を含めて報告された31例の転移性のヘルニア嚢腫瘍について, 患者の年齢と性別, 還納の可否, ヘルニアの病期, 期間, 症状・悪性腫瘍の既往, 原発部位, ヘルニア手術後の生存期間について調べた。

性別は、男24人、女7人で、年齢14歳～75歳（平均58歳）であった。鼠径ヘルニアそのものが、男性が女性の約5倍の頻度であることを考えると²⁴⁾、この比率は受け容れやすい数字と思われる。

還納の可否に関して、少なくとも9例が非還納例であった。Fieberら¹⁾は、原発性のヘルニア腫瘍に関して、自身の2例の経験から、非還納であることがヘルニア腫瘍の特徴であるとし、長期間ヘルニアが存在しそれが嵌頓に至った場合、特に高齢者の例では、ヘルニア腫瘍を疑うことも必要であると述べている。それ以降、転移性のヘルニア腫瘍に関しても、Fieberらの意見に賛成する報告がみられる一方で^{3) 33)}、Matsumotoら⁵⁾は、自験例1例を含む結腸の転移性鼠径ヘルニア腫瘍4例のうち嵌頓がみられたのは1例のみであったと否定的な報告をしている。

ヘルニアの自覚から手術までのヘルニア病悩期間は、記載のあった15例では、数日から3年の範囲で、中央値は6週間であった。

ヘルニア以外の症状としては、腹痛および体重減少がしばしばみられた。また、既往として、4例に悪性腫瘍の既往がみられた。これらの症状があったり、悪性腫瘍の既往のある者がヘルニアになった場合は、ヘルニア腫瘍の存在も疑うとよいであろう⁴⁾。

Table 1に掲げた転移性鼠径ヘルニア腫瘍の原発巣としては、虫垂が最も多かった。他に、大腸、膵臓、卵巣、胃、メッケル憩室、胸腺の報告があった。女性7人のうちでは5人が卵巣原発であった。さらに過去には、原発巣として、前立腺⁶⁾、腎²⁵⁾や膀胱、心膜、扁桃腺、皮膚の報告があった²⁾。われわれの検索する限りは、胆管細胞癌を原発とする転移性の鼠径ヘルニア腫瘍は、本症例が初めての報告であった。

転移性のヘルニア腫瘍の診断は、腹膜播種を意味し、予後が悪いと考えられる。ヘルニア手術後の生存期間は、原発巣と関連があるようである^{4) 37)}。手術療法・化学療法・放射線療法・ホルモン療法といった集学的治療に反応する虫垂、卵巣では、ヘルニア手術後生存期間が5年を越える症例もみられた。一方、本症例は5か月で死亡しており、胆管細胞癌は予後が悪いと考えられた。一般に胆管細胞癌は末期まで症状が発現しないことが多く、また肝細胞癌と違ってハイリスクグループも存在しないことから、早期発見が困難で、発見されたときには高度進行癌であることが多い²⁶⁾。自験例は、鼠径ヘルニア手術の際に発見したヘルニア囊への腹膜播種が、胆管細胞癌の診断のきっかけと

なった。

鼠径ヘルニア手術時に切除したヘルニア囊は腹膜生検という意味をも有しており、われわれの経験した症例のように、切除したヘルニア囊をきっかけとして悪性腫瘍が発見されることがある。鼠径ヘルニアの手術は、一般外科医にとって最も機会の多い手術の一つであるが、切除したヘルニア囊が少しでも肉眼的に正常ではないと考えた場合には、組織学的検索が積極的になされるべきであろう。

文 献

- 1) Fieber SS, Wolstenholme JT : Primary tumors in inguinal hernial sacs. Arch Surg 71 : 254-256, 1955
- 2) Yoell JH : Surprises in hernial sacs-Diagnosis of tumors by microscopic examination. Calif Med 91 : 146-148, 1959
- 3) Roslyn JJ, Stabile BE, Rangenath C : Cancer in inguinal and femoral hernias. Am Surg 46 : 358-362, 1980
- 4) Nicholson CP, Donohue JH, Thompson GB et al : A study of metastatic cancer found during inguinal hernia repair. Cancer 69 : 3008-3011, 1992
- 5) Matsumoto G, Ise H, Inoue H et al : Metastatic colon carcinoma found within an inguinal hernia sac : Report of a case. Surg Today 30 : 74-77, 2000
- 6) Lowenfels AB, Ahmed N, Rohman M et al : Hernia-sac cancer. Lancet 1 : 651, 1969
- 7) Al-Idrissi HY, Al-Arfaj AL, Sowayan SA et al : Unusual presentation of cancer. Aust N Z J Surg 61 : 707-708, 1991
- 8) 米村 豊 : 腹膜播種。へるす出版、東京、1996、p 3-70
- 9) 山田直人、塩谷陽介、瀬崎晃一郎ほか : 外鼠径ヘルニア囊の病理組織学的検査より診断された虫垂癌による腹膜偽粘液腫の1例。神奈川医学会誌 15 : 256-257, 1988
- 10) Dixon AY, McAnaw M, McGregor DH et al : Dual carcinoid tumors of Meckel's diverticulum presenting as metastasis in an inguinal hernia sac : Case report with literature review. Am J Gastroenterol 83 : 1283-1288, 1988
- 11) 今井博之、木元正利、長野秀樹ほか : 鼠径ヘルニアの手術時に診断し治療した虫垂原発腹膜偽粘液腫の1例。川崎医学会誌 14 : 645-649, 1988
- 12) 山本秀和、金子一郎、野浦 素ほか : 鼠径ヘルニアで発症した腹膜偽粘液腫の1例。高山赤十字病院紀 13 : 99-103, 1989
- 13) Knecht JW : Cancer in inguinal hernias. N J Med 87 : 485-487, 1990

- 14) 熊澤博久, 高木真人, 岩畔 彪 : ヘルニア嚢の組織所見から腹部消化器癌を検索しえた2症例 . 外科診療 6 : 883 886, 1991
- 15) Norman J, McAllister E, Wasselle J : Laparoscopy through an inguinal hernia for diagnosis of intraperitoneal pathology. J Laparoendosc Surg 2 : 339 341, 1992
- 16) Plaxe SC, Dottino PR, Cohen CJ : Gynecologic malignancy presenting as hernia. Am Fam Physician 47 : 51 54, 1993
- 17) 増子 洋, 新井英樹, 野本一博ほか : 右鼠径ヘルニア嚢の病理学的検索にて診断された膵癌腹膜播種再発の1例 . 外科 57 : 1744 1747, 1995
- 18) 松田充宏, 足立信也, 森島 勇ほか : 鼠径ヘルニア内容から診断された虫垂原発の腹膜偽粘液腫の1例 . 日消外会誌 29 : 99 103, 1996
- 19) Ben-Hur H, Schachter M, Mashiah A et al : Recurrent mucinous adenocarcinoma of the ovary presenting as an inguino-labial hernia. Eur J Gynaecol Oncol 17 : 299 302, 1996
- 20) 田中玲人, 待木雄一, 朽名 靖 : 鼠径ヘルニアを契機に発見された腹膜偽粘液腫の1例 . 日臨外医会誌 58(増) : 492, 1997
- 21) LeClair LL, Mitchell CS : Colon carcinoma discovered in an adolescent during inguinal hernia repair. J Am Osteopath Assoc 97 : 100 101, 1997
- 22) Edwards DP, Scott HJ : The use of laparoscopy in a case of appendiceal cystadenoma presenting as pseudomyxoma peritonei in an inguinal hernial sac. J R Coll Surg Edinb 43 : 112 113, 1998
- 23) 井口智雄, 永井信行, 高橋雅明ほか : 鼠径ヘルニアで発症した腹膜偽粘液腫の1例 . 外科治療 80 : 506 508, 1999
- 24) Skandalakis JE, Gray SW, Ricketts RR, Skandalakis LJ : Incomplete closure of the processus vaginalis : Inguinal hernia and hydrocele. Edited by Skandalakis JE, Gray SW. Embryology for surgeons The embryological basis for the treatment of congenital anomalies , Second edition. Williams & Wilkins, Baltimore · Hong Kong · London · Sydney, 1994, p578 584
- 25) Kanzer B, Rosenberg RF : Unusual contents in inguinal hernia sacs. N Y State J Med 83 : 1055 1056, 1983
- 26) Gennari L, Doci R, Bozzetti F : Liver tumours. Edited by Peckham M, Pinedo H, Veronesi U. Oxford textbook of oncology. Oxford University Press, Oxford · New York · Tokyo, 1995, p1213 1217

A Case of Cholangiocarcinoma that Metastasized to an Inguinal Hernial Sac

Dai Shida, Fuyo Yoshimi, Yukiyo Ogata, Yuji Asato,
Jirou Shimazaki* and Masao Hori*

Departments of Surgery and Pathology*, Ibaraki Prefectural Central Hospital and Cancer Center

While inguinal hernia is one of the most common diseases, and neoplasms of any organs are seen with great frequency, combinations of the two, i.e., hernial tumors are rare. A case of cholangiocarcinoma with metastasis to an inguinal hernial sac is reported. A 72 year-old Japanese man was admitted with a left inguinal hernia of 3 years' duration. His health was otherwise generally good. Herniorrhaphy was performed, and the redundant hernial sac was excised. The gross hernial sac specimen contained two tiny, white nodule-like thickened areas, and histological examination revealed an unexpected adenocarcinoma. After further examination, a diagnosis of cholangiocarcinoma with peritonitis carcinomatosa was made. Tumors of saccular type herniae are rare, and according to the results of a search of the English and Japanese literature, this is the first report of a case of cholangiocarcinoma that metastasized to an inguinal hernial sac.

Key words : inguinal hernia, hernial sac tumor, cholangiocarcinoma with peritonitis carcinomatosa

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 1816 1820, 2000]

Reprint requests : Dai Shida Department of Gastroenterological Surgery, University of Tokyo
3 28 6 Mejirodai, Bunkyo-ku, Tokyo, 112 8688 JAPAN