

## 完全内臓逆位症に合併した総胆管癌の1例

本荘第一病院外科

細井 則人 斉藤 孝 鈴木 克彦

完全内臓逆位症に合併した総胆管癌の1例を経験した。症例は70歳の男性で、黄疸を指摘され当院紹介された。胸部単純X線写真で右胸心をもとめた。腹部超音波検査にて完全内臓逆位および肝内胆管および総胆管の著明な拡張をもとめた。磁気共鳴胆管造影検査および経皮経肝胆道造影検査にて上部胆管の全周性の狭窄をもとめた。以上から、総胆管癌の診断で手術を施行した。腫瘍の右肝動脈への直接浸潤がみられ、また右肝管への浸潤をもとめたため肝右葉切除術および肝管空腸吻合にて再建を行った。完全内臓逆位に合併した総胆管癌の本邦での報告は自験例を含め6例目であり報告した。

### はじめに

内臓逆位症(以下、本症)は内臓の一部または全部が左右逆転し、正常位に対して鏡面的位置関係にあるものをいう。本邦においては2千人から1万人に1人の割合で認められる比較的正常な疾患である<sup>1)</sup>。それ自体に病的意義はないが、近年悪性腫瘍との併存が注目されている。その中で総胆管癌との併存例は、本邦では我々の検索した限りでは自験例が6例目である。今回、我々は完全内臓逆位症に合併した総胆管癌に対して、胆管切除術および肝右葉切除術を行った症例を経験したので、文献の考察を加え報告する。

### 症 例

症例: 70歳, 男性

主訴: 黄疸

既往歴: 67歳のとき胆嚢結石にて腹腔鏡下胆嚢摘出術を受けている。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 2000年4月5日、超音波検査で総胆管拡張を指摘された。6月5日黄疸を指摘され近医受診し閉塞性黄疸の診断で当院紹介された。

入院時現症: 身長145cm, 体重45kg, 血圧112/64 mmHg, 脈拍80/分, 体温36.7, 全身に著明な黄疸をみとめた。

臨床検査所見: T. Bil 10.5mg/dl と著明な黄疸をみとめ, GOT 237IU/l, GPT 455IU/l, ALP 2,383IU/l,  $\gamma$ -GTP 1,582IU/l と肝胆道系酵素の上昇およびCEAも8.1ng/ml と上昇をみとめた (Table 1)。

胸部X線写真所見: 右胸心と右横隔膜下に胃泡をみとめた (Fig. 1)。

腹部超音波検査所見: 総胆管および肝内胆管の著明な拡張をみとめた (Fig. 2)。

磁気共鳴胆管膵管造影検査(以下, MRCP)所見: 上部胆管の全周性の狭窄をみとめた (Fig. 3)。

経皮経肝胆道造影検査(以下, PTC)所見: 肝内胆管の拡張と上部胆管の全周性狭窄をみとめた (Fig. 4)。

腹部CT所見: 門脈の左側に総胆管と連続する直径13mm大の腫瘤をみとめた (Fig. 5)。

腹部血管造影検査所見: 右肝動脈の胆嚢動脈分岐部付近のクリップの位置の所に軽度の encasement をみとめた。その他の血管の走行異常はみとめなかった (Fig. 6)。

以上より、完全内臓逆位を伴った総胆管癌の診断で2000年7月4日、手術を施行した。

手術所見: 腫瘍の右肝動脈への直接浸潤が疑われ、また右肝管への浸潤をみとめたため肝右葉切除術および胆管は左肝管で切離し、肝管空腸吻合にて再建を行った。尾状葉は切除しなかった。腫瘍は3×2cmで、胆道癌取扱い規約<sup>2)</sup>に従うと、Bsmpr, Circ, S<sub>0</sub> Hinf<sub>0</sub> H<sub>0</sub> Panc<sub>0</sub> Du<sub>0</sub> PV<sub>0</sub> Arh<sub>2</sub> P<sub>0</sub> N<sub>1</sub> ( + ) M ( - ) D<sub>2</sub> Surgical stage IVa で根治度 A であった。

病理組織学的には moderately differentiated tubular adenocarcinoma で腫瘍の右肝動脈外膜への浸潤がみとめられた。

術後経過は良好で9月9日退院した。

### 考 察

内臓逆位症は内臓の一部または全部が左右逆転し、正常位に対して鏡面的位置関係にあるものをいう。本

< 2001年5月23日受理 > 別刷請求先: 細井 則人  
〒015 8567 本荘市出戸町字岩瀬下110 本荘第一病院外科

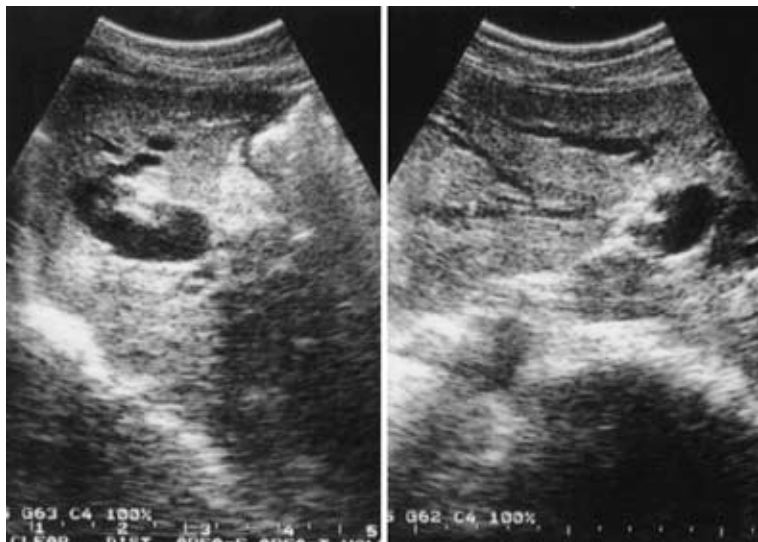
Table 1 Laboratory data on admission

WBC	4,600 /mm <sup>3</sup>	Na	139 mEq/l
RBC	481 × 10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	K	4.0 mEq/l
Hb	13.5 g/dl	Cl	101 mEq/l
Ht	43.1 %	BUN	12 mg/dl
Plt	20.3 /mm <sup>3</sup>	Cr	0.7 mg/dl
T. P.	6.8 g/dl	CEA	8.1 ng/ml
T. Bil	10.5 mg/dl	CA19-9	26 U/ml
D. Bil	9.4 mg/dl		
GOT	273 IU/l		
GPT	455 IU/l		
LDH	454 IU/l		
γ-GTP	1,582 IU/l		
ALP	2,383 IU/l		
LAP	1,360 IU/l		
Amylase	110 IU/l		

Fig. 1 Chest x-ray revealed dextrocardia and gastric gas in the right upper abdomen.



Fig. 2 Abdominal ultrasonography showed a dilation of the intrahepatic and common bile duct.



邦においては2千人から1万人に1人の割合で認められる比較的古い疾患である<sup>1)</sup>。本症は胸腹部臓器のいずれもが逆転する完全内臓逆位症と部分内臓逆位症に分類されるが、6:1の割合で完全内臓逆位症が多いといわれている<sup>1)</sup>。その成因として代表的なものをあげると、胎生初期に主要臓器原基の局所的配置が乱れ、

これが他臓器の逆位形成を誘発するという全臓器転移説<sup>3,4)</sup>、胎児の一部が強く温められるために転移が起こるという不同加温説<sup>3)</sup>、重複奇形児の一方に内臓逆位がしばしばみられることから考えられた双胎説<sup>4)</sup>、発生途上胎芽が正常とは逆に右へ回転し卵黄嚢が胎芽の右へくることにより本症が誘発されるとする胎芽回

Fig. 3 Magnetic resonance cholangiopancreatography (MRCP) showed a dilation of the intrahepatic bile duct and an obstruction of the common bile duct from the upper to the middle.

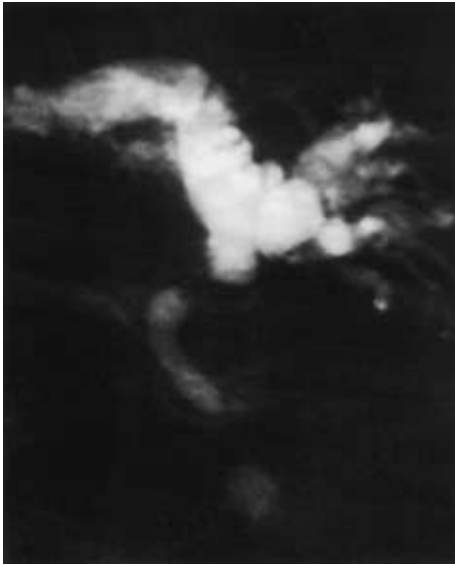


Fig. 4 Percutaneous transhepatic cholangiography (PTC) revealed a dilation of the intrahepatic bile duct and an obstruction of the common bile duct from the upper to the middle.



Fig. 5 Abdominal CT with arteriportography showed a mass 13mm in diameter in the left of the portal vein.

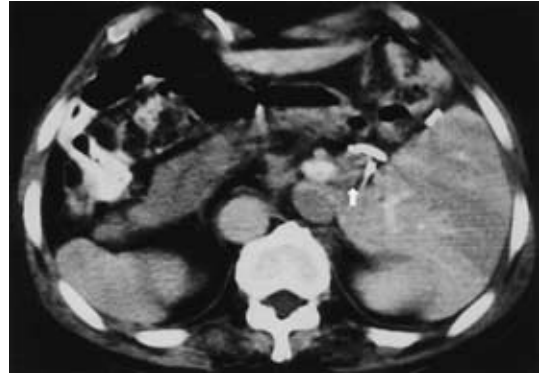
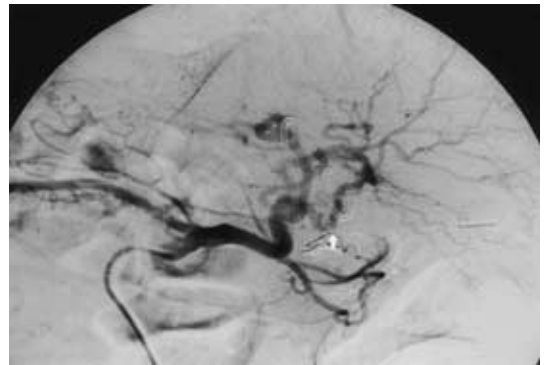


Fig. 6 Abdominal angiography revealed an encasement of the right hepatic artery near the clips.



転説<sup>5)</sup>, その他, 遺伝説<sup>1)B)</sup>, Organisator 説<sup>6)</sup>などがあげられるがまだ定説はない.

内臓逆位症はそれ自体病的意義はないが, 臨床的に問題となるのは心血管系, 消化器系などの合併奇形が多いこと, 逆位による診断的, 手術手技的困難性が生じることがあげられる. 本症における心血管系合併奇形は8~10%で正常人の約10倍といわれている<sup>7)</sup>. 消化器系合併奇形では腸回転異常, 先天性胆道閉鎖, 前十二指腸門脈, 十二指腸閉鎖, 多脾症, 輪状脾, 横隔膜ヘルニアなどが報告されている<sup>8)</sup>. しかし, 完全内臓逆位症では部分内臓逆位症に比べ他に奇形を合併する頻度は低いとされている. 自験例でも, 術前検査において, いずれの合併奇形も認めなかった. 奇形以外の外科的合併症として虫垂炎<sup>9)</sup>や胆石症<sup>10)11)</sup>も多く報告

Table 2 Reported cases of bile duct carcinoma with situs inversus viscerum in Japan

Author	Age/Sex	Location	Treatment	Situs inversus	
				Associated malformation	type
Maguchi (1989)	58/F	Bmsp	resection of bile duct, left lobectomy	pancreaticobiliary maljunction, dysplasia of pancreas, defect of inferior vena cava, anomaly of the gastroduodenal artery	totalis
Kohara (1990)	62/M	Bsmc	resection of bile duct	preduodenal portal vein, polysplenia, anomaly of the rt. hepatic artery	totalis
Kojima (1990)	64/F	Bm	resection of bile duct	giant aneurysm of internal carotid artery, polysplenia	partialis
Kurokawa (1996)	63/M	Bm	resection of bile duct	none	totalis
Sano (1998)	76/F	Bm	resection of bile duct, right and caudal lobectomy	unknown	unknown
this case	70/M	Bsmp	resection of bile duct, right lobectomy	none	totalis

されている。自験例でも胆嚢結石に対して、我々の施設において腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行されている。

自験例では、総胆管癌の術前診断の際、右側臥位にて内視鏡的逆行性胆道造影検査を試みたが手技的に困難であったため施行されなかった。しかし MRCP および PTC にて十分な局在診断が得られ、特に低侵襲である MRCP が有用であると思われた。また、本症の系統解剖で多くの動脈系異常が指摘され<sup>12)~14)</sup>、特に腹腔動脈や上腸間膜動脈系で多数のバリエーションが報告されており、術前の腹部血管造影検査は非常に重要であると思われる。自験例においてはこれらの動脈系において走行異常は認めなかった。

近年、内臓逆位症と悪性腫瘍との併存の報告例が増加し注目されているが、その因果関係は一般に不明である。悪性腫瘍の中でも特に消化器系の癌の併存が多く、中でも本邦では胃癌の報告例が多い<sup>15)</sup>。しかし、総胆管癌と内臓逆位症との合併例の報告は少なく、本邦では自験例を含め6例のみである<sup>16)~20)</sup> (Table 2)。6例中自験例を含め3例で肝切除術が施行されている。内臓逆位症でも、手術手技そのものは通常の胆道再建および肝切除術と同様であるが、本症では脈管系および胆管系の奇形が合併することも多く、術前の画像診断による十分な走行確認が重要である。また術中も常に内臓逆位であることを意識して、脈管や胆管系の走行を正常位に再構築させながら進めていく必要がある。術前の解剖学的把握が十分であれば、手術操作はそれほど問題ではないと考える。術者の立ち位置に関しては、右側か左側かなどで論議されているが、

今回、我々は通常通り右側に立ったが、概して不自由さは感じられなかった。

以上、内臓逆位症例の手術の際、解剖学的理由によりその操作に影響を及ぼすことも考えられる。しかし、術前の画像診断と解剖の把握により安全に胆道再建を伴う肝切除術を施行しうると考える。

#### 文 献

- 1) 安藤建治：内臓逆位症に就いて。グレンツゲビート 14：1127 1161, 1940
- 2) 日本胆道外科研究会編：外科・病理 胆道癌取り扱い規約。第4版。金原出版，東京，1997
- 3) 筒井一興，松沢信五：完全内臓逆位者の胃癌手術例。臨放線 1：637 740, 1956
- 4) 安田峯生：内臓逆位症。木本誠二監修 現代外科学大系8-B。中山書店，東京，1974, p261 263
- 5) Schmuter KJ, Linde LM：Situs inversus totalis associated with complex cardiovascular anomalies. Am Heart J 56：761 768, 1958
- 6) 三上美樹：内臓逆位とその成因について。新潟医学会誌 66：289 295, 1952
- 7) 三浦敏夫，内田雄三，飛永晃二ほか：内臓逆位症を伴った若年者胃癌症例。外科診療 7：871 876, 1973
- 8) 西田 雄，岩本公和，奥井重俊ほか：内臓逆位症に十二指腸乳頭部癌を認めた1例。Prog Dig End 30：318 321, 1987
- 9) 清成正智，滝沢佐武郎，津島正憲ほか：急性虫垂炎を併発する完全内臓逆位症の1例とその統計学的観察。臨と研 44：2411 2414, 1964
- 10) 船本慎作，木川三四郎，平井修二ほか：全内臓逆位症に合併した胆石症に対して腹腔鏡下胆嚢摘出術

- を施行した1例.日消外会誌 29:741-745,1996
- 11) 千野 修,佐々木哲二,近藤泰理ほか:全内臓逆位症に合併した胆石症に対し腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例.消内視鏡 7:1171-1176,1995
- 12) 岩本壯太郎,西田正規,河辺俊雄:多数の破格を伴った内臓全逆位1.腹部動脈系の破格.近畿大医誌 1:149-163,1976
- 13) 谷家章五,大町信子,稲田真澄ほか:種々の器官異常を伴った全内臓逆位症について.解剖誌 59:94-103,1984
- 14) 北村清一郎,堺 章,中島裕子ほか:上腸間膜動脈より分岐する変異総肝動脈を伴う全内臓逆位症の1例.解剖誌 63:547-552,1988
- 15) 小島則昭,坂下文夫,本多俊太郎ほか:完全内臓逆位症を併存した進行胃癌の1例.日消外会誌 32:2649-2653,1999
- 16) 真口宏介,村住和彦,伊藤彰規ほか:完全内臓逆位症に膵・胆管合流異常と膵の形成異常を伴った総胆管癌の1例.胆道 3:307,1989
- 17) 小原則博,森 宣陽,水田一正ほか:全内臓逆位症,前十二指腸門脈に合併した肝門部胆管癌の1例.胆道 4:90-96,1990
- 18) 小島弘之,鈴木 裕,徳永恵子ほか:内臓逆位および巨大内頸動脈瘤を伴う胆管癌の1例.日臨内医学会誌 4:308,1990
- 19) 黒河 聖,阿部 敬,酒井 基ほか:完全内臓逆位症に総胆管癌を合併した1例.市立釧路医誌 8:174-177,1996
- 20) 佐野 力,神谷順一,柳野正人ほか:内臓逆位を伴う肝門部胆管癌に対する肝右葉切除,尾状葉切除術.日臨外会誌 59:659,1998

### A Case of Common Bile Duct Carcinoma with Situs Inversus Totalis

Norihito Hosoi, Takashi Saito and Katsuhiko Suzuki  
Department of Surgery, Honjo Daiichi Hospital

We treated common bile duct carcinoma with situs inversus totalis in a 70-year-old man hospitalized due to icterus. Chest x-ray revealed dextrocardia. Abdominal ultrasonography showed situs inversus totalis and dilation of the intrahepatic and common bile duct. Magnetic resonance cholangiography and percutaneous transhepatic cholangiography showed an obstruction of the upper bile duct. We performed, based on a diagnosis of common bile duct carcinoma, the resection of the bile duct and right lobectomy because the tumor invaded directly to the right hepatic artery and right hepatic duct. This is, to our knowledge, only the sixth case of common bile duct carcinoma with situs inversus viscerum reported in the Japanese literature.

Key words : situs inversus totalis, common bile duct carcinoma

[ Jpn J Gastroenterol Surg 34 : 1419-1423, 2001 ]

Reprint requests : Norihito Hosoi Department of Surgery, Honjo Daiichi Hospital  
110 Iwabuchishita, Detomachi Aza Honjo-shi, Akita, 015-8567 JAPAN