

肝内胆管嚢胞腺癌の1切除例

岡崎市民病院外科

金住 直人 鈴木 祐一 本山 彩 小林 大介
加藤 公一 江口 武彦 木村 次郎 石井 正大

症例は59歳の女性。検診にて肝機能異常・胆道系酵素の上昇を指摘され、精査目的に入院となった。腹部CTにて肝内側区域に径4cm大の嚢胞性病変とその内部に不均一な造影効果を伴う乳頭状腫瘤を認めた。腹部MRIでは、T1強調像で低信号、T2強調像で高信号の嚢胞性病変を認め、嚢胞内にはT1強調像で肝組織よりやや低信号、T2強調像でやや高信号の乳頭状腫瘤を認めた。選択的血管造影では肝内動脈枝の圧排伸展および嚢胞の内部に結節状濃染像を認めた。以上より、胆管嚢胞腺癌の術前診断にて、拡大肝左葉切除、左尾状葉切除、胆嚢・肝外胆管切除、リンパ節郭清術を施行した。摘出標本では、4×3×5cm大の多房性の嚢胞性病変を認め、その内腔には充実性組織が乳頭状に増生していた。嚢胞は、粘調透明な液体に満たされていた。病理組織学的に胆管嚢胞腺癌の診断であった。術後2年2か月経過した現在、再発の兆候なく健在である。

はじめに

近年、画像診断の進歩に伴い肝の嚢胞性病変は比較的容易に診断が可能となっている。しかし、胆管嚢胞腺癌はまれな疾患であり、文献上^{1,2)}散見されるにすぎない。今回、我々は術前診断しえた胆管嚢胞腺癌の1切除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：59歳、女性

主訴：肝機能異常

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成10年9月の検診にて肝機能異常・胆道系酵素の上昇を認め近医受診するも経過観察となる。翌年9月の検診にても同様の異常を指摘されたために当院内科を受診し精査の後、手術目的に外科転科となる。

入院時現症：身長154cm、体重43kg、血圧118/62mmHg、脈拍85/分、体温36.1℃。貧血・黄疸は認めず。表在リンパ節・肝・脾は触知せず。

入院時検査所見：軽度の肝機能障害と胆道系酵素の上昇のみを認めた。各種腫瘍マーカーは正常範囲であり、HBs抗原・HCV抗体も陰性であった。ICG(15

分値)は4.9%であった。

腹部超音波：肝内側区域に径4cmの嚢胞性病変とその内部に乳頭状腫瘤を認めた。

腹部CT：肝内側区域に内部不均一な造影効果を伴う嚢胞性病変を認めた。嚢胞より末梢側の胆管の拡張を認めた(Fig. 1)。

内視鏡的逆行性胆管X線造影：嚢胞のごく一部が描出されるのみで左肝内胆管、嚢胞は造影されなかった。粘性の高い嚢胞液の存在が示唆された。総胆管は軽度拡張していた(Fig. 2)。

腹部MRI：T1強調像で低信号、T2強調像で高信号の嚢胞性病変を認め、嚢胞内にT1強調像で肝組織よりやや低信号、T2強調像でやや高信号の乳頭状腫瘤を認めた(Fig. 3)。

選択的血管X線造影：左肝動脈と中肝動脈の分枝に圧排伸展がみられ、中肝動脈の分枝の末梢に腫瘍血管の増生がみられ、嚢胞の内部に結節状濃染像を認めた(Fig. 4)。

嚢胞の穿刺細胞診は、嚢胞液の腹腔内への散布を憂慮して施行しなかった。以上の所見より、胆管嚢胞腺癌の術前診断にて、12月7日、拡大肝左葉・左尾状葉切除、胆嚢・肝外胆管合併切除術を施行した。胆管および肝の切除範囲は、術中超音波と術中胆管造影によって決定し、右胆管および総胆管断端は術中迅速病理検査にて陰性を確認した。また、肝十二指腸間膜内、脾頭部後面および総肝動脈周囲のリンパ節郭清を行っ

Fig. 1 Enhanced CT showed a cystic tumor with papillary projections in the left medial segment of the liver. Papillary projections in the cystic tumor were enhanced by the contrast material at an early phase (a), and it was washed out at a late phase (b).



Fig. 2 Endoscopic retrograde cholangiography showed that the left intrahepatic bile duct could not be found and only a little part of the cystic tumor was found (arrow).



た。

摘出標本：肝内側区域を中心に4×3×5cm大の多房性の嚢胞性腫瘍を認め、その内腔には充実性組織が乳頭状に増生していた。嚢胞は粘調透明な液体に満たされていた (Fig. 5, 6)。

なお、嚢胞液中のCEA, CA19 9は、それぞれ35.9 ng/ml, 8411ng/mlと高値であった。

病理組織学的所見：拡張した嚢胞壁は円柱上皮で覆われており、乳頭状に内腔に増生した異型性の強い腫瘍を認め、間質浸潤も認めた (Fig. 7)。

また、 α -smooth muscle actin, vimentin, desmin, myoglobinの免疫組織染色は、すべて陰性であった。Bile duct cystadenocarcinoma (胆管嚢胞腺癌)の診断であった。なお、摘出したリンパ節に転移はなく、“ovarian-like” stromaは認めなかった。

考 察

胆管嚢胞腺癌は、1943年 Willis³が carcinoma aris-

ing in congenital cyst of the liver として単純性肝嚢胞の癌化例を報告し、1965年 Tompsonら⁴が intrahepatic cystadenoma of bile duct origin with malignant alteration として嚢胞腺腫からの腺癌の発生例を報告した。本邦では小坂ら¹の報告以来約140例の報告がある²。日本肝癌研究会の全国集計では原発性肝癌16,539例中32例(0.19%)とまれな疾患である⁵が、近年の画像診断の発達によりその報告例は増加している。

しかし、胆管嚢胞腺癌に対する一定の定義および分類法はいまだなく、原発性肝癌取扱い規約⁶では『乳頭状に増殖した粘液分泌性腫瘍細胞がならんで多房性嚢胞を形成し、嚢胞内には粘液を入れ、通常多中心性に発生する』と説明されている。Kawaradaら⁷は肝の嚢胞形成悪性腫瘍を広義に以下の3群に分類した。Group A: cystic adenocarcinoma, Group B: bile duct carcinoma with intrahepatic bile duct dilatation, Group C: degeneration cyst in malignant liver tumor。自験例は、Group Bに属するものと考えられた。また、病理学的検討から cystadenoma with mesenchymal stroma (CMS)⁸；“ovarian-like” stromaの存

Fig. 3 T1-weighted MRI showed a low intensity lesion with inner structure of lower intensity than that of the liver (T1). A large part of tumor had markedly high intensity and the inner structure had slight high intensity in T2-weighted MRI (T2)

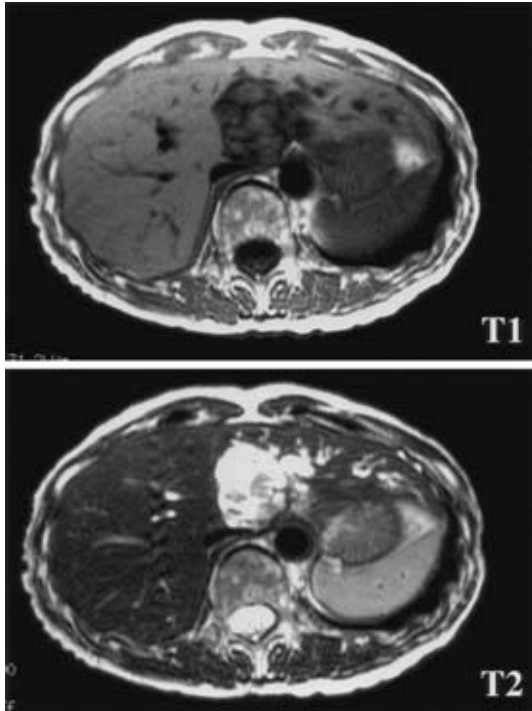
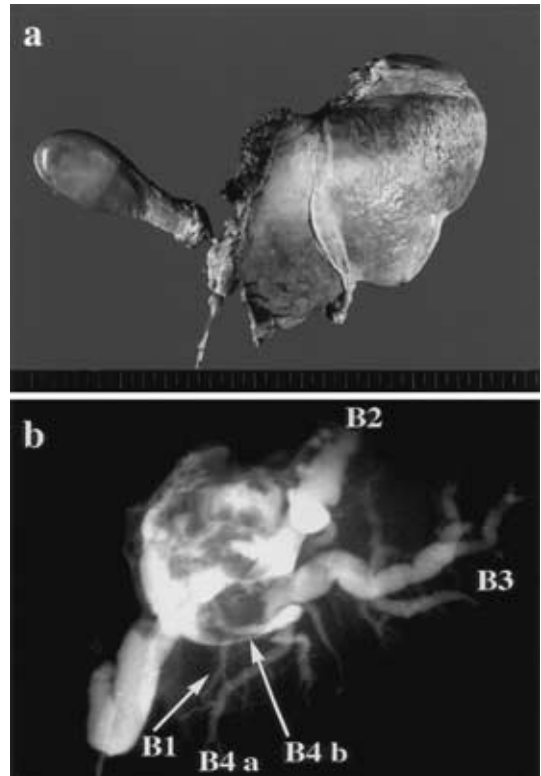


Fig. 4 Selective arteriogram showed stretching of the left and middle hepatic arterial branches and focal tumor vessels at the periphery of the middle hepatic artery.



Fig. 5 (a): Resected specimen (b): Cholangiography of the resected specimen.



在する症例もあり、そのような症例では予後が良好であると報告されている⁸⁾。自験例では、CMS や “ ovarian-like ” stroma の存在は認めなかった。

胆管嚢胞腺癌の発病年齢は 20 ~ 80 歳で 50 歳代に最も多く、性別は約 1 : 2 で女性に多い傾向にあり通常の肝細胞癌とは異なる²⁾。臨床症状は、腹痛、腹部腫瘍、腹部膨満感などで特徴的な症状はない。

本疾患の診断には画像診断が有用である。画像診断上の特徴は超音波および CT 検査では胞内の充実成分または壁に結節の存在。MRI 検査では、その内部に粘液成分を含むために T1 強調像で比較的高信号、T2 強調像で高信号を呈することが特徴的であるが、組織内出血や壊死組織などの混在により低信号と高信号が混在する不均一パターンを呈することもある⁹⁾。血管 X 線造影では肝内血管の圧排・伸展・新生血管の増生と充実性部分の濃染を認めることなどである¹⁰⁾。画像診断上、良悪性の鑑別が困難な場合には、嚢胞穿刺細胞診も試みられているが、嚢胞穿刺により腫瘍細胞の

Fig. 6 Cut surface of the resected specimen. (a) : Gross view of the cut surface. Prominent papillary projections were found. The papillary projections developed near the common hepatic duct (b) The left caudate lobe was found to be atrophy (c)

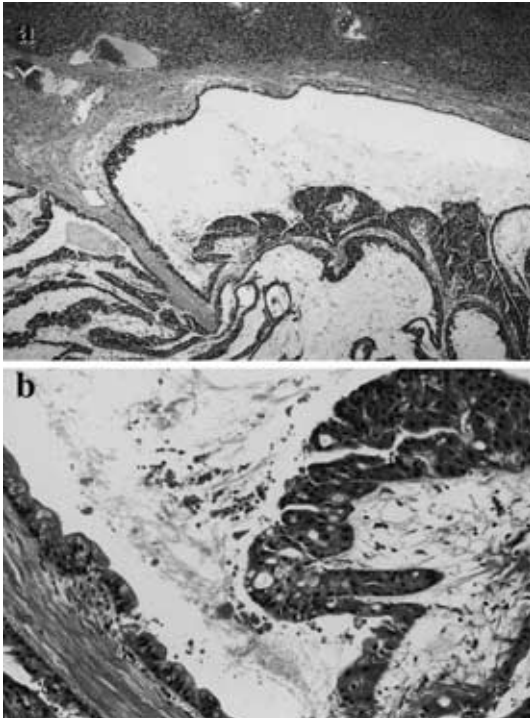
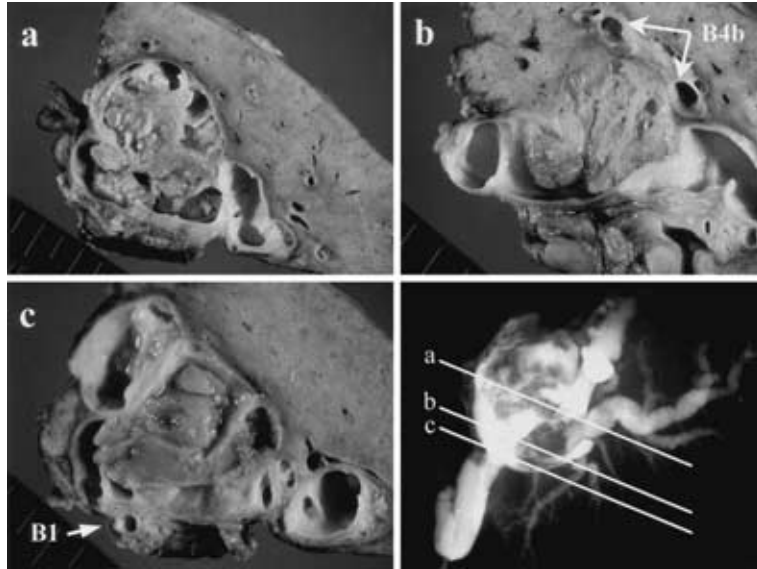


Fig. 7 Histopathological findings showed that the cyst wall lined with a columnar epithelium and papillary-growing biliary cystadenocarcinoma was seen. (a) : H.E. x 40 ; (b) : H.E. x 200.

播種をきたした報告¹¹⁾もあるため、本症例では術前の穿刺は行わなかった。

胆管嚢胞腺癌の治療は、肝切除術をはじめ TAE、化学療法、放射線療法などが試みられているが、TAE、化学療法、放射線療法は奏効率がほとんどない¹²⁾。現在では嚢胞を含んだ十分な肝切除が第一選択であり、腫瘍と胆管との交通がない場合は、腫瘍占居部の区域切除、胆管との交通を認める場合は、区域胆管の切除、胆管内粘液の除去、肝外胆管切除およびリンパ郭清が妥当と考えられる。

予後については、一般的に肝細胞癌や胆管細胞癌と比べ良好とされている^{12)~14)}が、胆管との交通がある例では必ずしも良好でないとの報告もある¹²⁾¹⁴⁾。しかし、近年の画像診断の進歩により早期発見が可能となっており、適切な外科的切除にて今後は治癒切除例の増加による予後の改善が期待できると考えられ

た。

なお、本論文の要旨は第55回日本消化器外科学会総会(2000年7月宮崎)にて発表した。

文 献

- 1) 小坂 進, 水上哲次, 橋本之方ほか: 嚢腫形成型肝癌について. 日外会誌 71: 1292-1294, 1970
- 2) 山本栄和, 田中 明, 辻 勝成ほか: 胆管嚢胞腺癌の1例. 日消外会誌 33: 215-219, 2000
- 3) Willis RA: Carcinoma arising in congenital cysts of the liver. J Pathol Bacteriol 55: 492-495, 1493
- 4) Tompson JE, Wolff M: Intrahepatic cystadenoma of bile duct origin with malignant alteration. Report of a case. Treated with total left hepatic lobectomy. Mil Med 130: 218-224, 1965
- 5) 日本肝癌研究編: 第13回全国原発性肝癌追跡調査報告(1994-1995). 日本肝癌研究会事務局, 京都, 1996
- 6) 日本肝癌研究会編: 原発性肝癌取扱い規約. 第3版. 金原出版, 東京, 1992
- 7) Kwarada Y, Takao H, Mizumoto R: A report 5 cases of cystic bile duct carcinoma of the liver and proposal of a new classification. Jpn Gastroenterol 26: 80-89, 1991
- 8) 草野満夫: 肝嚢胞性腫瘍 CMSの疾患概念からみた. 肝臓 39: 611-620, 1998
- 9) 真下六郎, 林 一資, 定本哲郎ほか: Magnetic resonance imaging が診断に有用であった肝嚢胞腺癌の1例. 日消外会誌 24: 1285-1289, 1991
- 10) 小久保 宇, 古井 滋, 大友 邦ほか: 肝嚢胞腺種・腺癌の画像診断. 臨放線 30: 549-554, 1985
- 11) Iemoto Y, Kondo Y, Fukamachi S: Biliary cystadenocarcinoma with peritoneal carcinomatosis. Cancer 48: 1664-1667, 1981
- 12) 内野純一, 倉内宣明, 佐治 裕ほか: 嚢胞性腺癌 肝嚢胞性腺癌の治療. 肝胆膵 24: 285-293, 1992
- 13) Ishak KG, Willis GW, Cummins SD et al: Biliary cystadenoma and cystadenocarcinoma: Report of 14 cases and review of the literature. Cancer 38: 322-338, 1977
- 14) 中島 透, 近藤洋一郎: 肝嚢胞性腺癌の病理. 肝胆膵 2: 269-274, 1992

A Case of Intrahepatic Biliary Cystadenocarcinoma

Naohito Kanazumi, Yuichi Suzuki, Aya Motoyama, Daisuke Kobayashi,
Kouichi Kato, Takehiko Eguchi, Jiro Kimura and Masataka Ishii
Department of Surgery, Okazaki City Hospital

A 59-year-old woman admitted for further examination of liver function disorder in a blood chemistry test, incidentally pointed out by screening, was found in abdominal computed tomography (CT) to have a cystic tumor 4 cm in diameter with papillary projections arising from the cystic wall, which were enhanced by contrast material, in the left medial segment of the liver. T1-weighted magnetic resonance imaging (MRI) showed a low-intensity lesion with an inner structure of lower intensity than that of the liver. A large part of tumor had markedly high intensity and the inner structure had slight high intensity in T2-weighted MRI. Selective arteriography showed stretching of the hepatic arterial branches, focal tumor vessels, and tumor stains. Based on a diagnosis of biliary cystadenocarcinoma, extended left hepatic lobectomy including resection of the left caudate lobe, bile duct resection, and lymph node dissection were conducted. Examination of the resected specimen showed a 4 × 3 × 5 cm multilocular cystic tumor with prominent papillary projections inside, consisting of a jelly-like mucinous substance. Histopathologically the cystic tumor was diagnosed as biliary cystadenocarcinoma. The patient is doing well and has no recurrence as of 2 years and 2 months after surgery.

Key words: biliary cystadenocarcinoma, hepatic cystic tumors, bile duct cystadenocarcinoma

[Jpn J Gastroenterol Surg 35: 1399-1403, 2002]

Reprint requests: Naohito Kanazumi, Department of Surgery, Okazaki City Hospital
3-1 Goshoi, Koryuji-cho, Okazaki, 444-8553 JAPAN