

下大静脈閉塞を伴った多包性肝エキノкокクス症 2 切除例の検討

北海道大学医学部附属病院第 1 外科

砂原 正男 神山 俊哉 佐藤 直樹
倉内 宣明 伊藤 東一 大久保 尚
片山 知也 松下 通明 藤堂 省

従来は肝切除不能とされた下大静脈浸潤,閉塞の多包性肝エキノкокクス症 2 例に対し,下大静脈切除を伴う肝右 3 区域切除,および下大静脈周囲郭清と肝左葉切除(減量手術)を行ったので報告する.71 歳の女性例は,下大静脈への浸潤閉塞のため切除適応なしとされたが,second opinion を求めて当科入院.肝右 3 区域切除に横隔膜・右副腎切除,肝部下大静脈を合併切除した.37 歳の女性例は,強固な浸潤が肝病巣から右心房外側と肝部下大静脈左縁に至り,一部病巣を残して肝左葉切除を行った.おのおの 2 年 8 か月健在である.当科では切除不能の本症は 7 年以内に全例が死亡したが,病巣遺残があっても肝切除とアルベンダゾール投与で約半数が 10 年生存する.これらのような高度進行例にも積極的な肝切除と浸潤部分の切除を行い,術後にアルベンダゾールを投与することで予後の改善が期待できる.

はじめに

多包性肝エキノкокクス症(hepatic alveolar echinococcosis;以下,HAEと略記)は,肝に腫瘍性病変を形成する寄生虫性疾患で,放置すると約 9 割が死亡する¹⁾.HAE は肝切除による病巣全切除でのみ治癒するが,進行例では減量手術とアルベンダゾール(albendazole;以下,ABZと略記)投与も有効²⁾である.今回,我々は下大静脈(inferior vena cava;以下,IVCと略記)に浸潤し閉塞をきたした進行 HAE の 2 例に肝切除と IVC 合併切除,IVC 周囲郭清の減量手術を行い良好な結果を得たので報告する.

症例 1

患者:71 歳,女性

主訴:背部の鈍痛,両下肢の浮腫.

職業:山中の電設工事現場の清掃員(キツネが多数出没).

既往歴:高血圧症.完全左脚ブロック.

現病歴:1999 年 10 月,主訴を自覚.2000 年 3 月,近医で IVC に浸潤し閉塞する HAE と診断さ

れ,手術適応なしとされたが,second opinion を求め,同年 9 月当科に入院.

入院時現症:身長 139cm,体重 55kg.血圧,脈拍,体温正常.腹部に腫瘤を触れず.軽度の黄疸と著明な両下腿浮腫を認めた.

入院時検査所見:WBC:4,100/mm³,Hb:11.2g/dl,Ht:33.9%,Plt:8.0×10⁴/mm³,T-bil:0.5mg/dl,GOT:32IU/l,GPT:51IU/l,LDH:368 IU/l, γ -GTP:75IU/l,ALP:270IU/l,LAP:184IU/l,BUN:33mg/dl,Cr:1.4mg/dlと,軽度の貧血と血小板減少,肝,胆道系酵素の異常,腎機能障害を認めた.血清電解質は異常なし.エキノкокクス血清検査は,ELISA 法と Western blot 法ともに陽性であった.

腹部 CT 検査所見:病巣は肝右葉と内側区の大半を占居し,肝部 IVC は腎静脈分岐部尾側に及ぶ陰影欠損を認めほぼ閉塞していた.右,中肝静脈は根部で閉塞し,左肝静脈は一部病巣に接していた.横隔膜,右副腎への病巣浸潤もみられた(Fig. 1).

血管造影検査所見:右肝動脈後枝と門脈後区域枝は根部で途絶し,門脈前区域枝の狭小化がみられた.

ERCP 検査所見：右肝管が根部で閉塞していた。

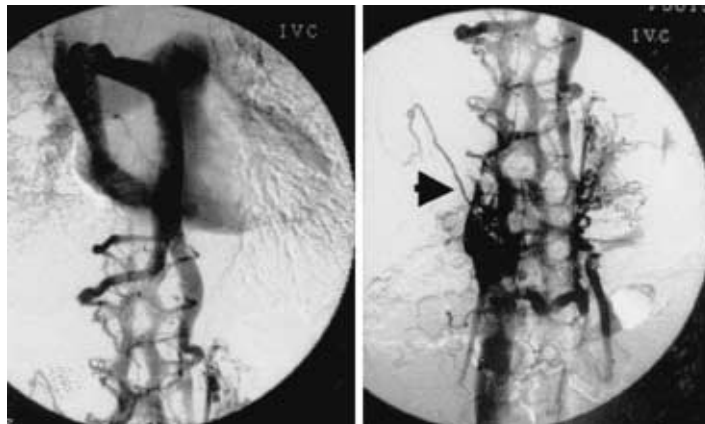
腹部 MRA 検査所見：IVC は肝部から腎静脈分岐部頭側まで同定不能であり，肝静脈は左肝静脈のみが描出された。

IVC 造影検査所見：IVC の閉塞と，上行腰静脈，椎骨静脈叢，奇静脈，半奇静脈を中心とした側副血行路が認められた (Fig. 2)。

Fig. 1 Abdominal enhanced CT scan showed obstruction of the retrohepatic inferior vena cava (IVC)



Fig. 2 Venacavogram showed complete obstruction of the retrohepatic IVC (arrow) and numerous collateral vessels mainly composed of ascending lumbar vein, vertebral venous plexus, azygos and hemiazygos vein (case 1)



手術所見：2000年10月3日，肝部IVC切除を含む肝右3区域切除を行い，同時に浸潤する横隔膜，右副腎も合併切除した。側副血行路の発達が良好なこと，腎静脈上部IVCの1次クランプで血圧の低下がないことから，IVC切除後の再建は行わなかった。左肝静脈根部に病巣が一部残存した。

切除標本所見：肝右3区域はほぼ全域の黄色調の硬い病巣がIVCを巻き込み，その内腔は浸潤と圧排により完全閉塞していた。病理組織では壊死組織中に多数のクチクラに囲まれた微小嚢胞の形成があり，肉芽反応やリンパ球浸潤を辺縁部に認め，典型的なHAEの所見であった (Fig. 3)。

術後経過：一過性の腎機能障害，肝切離面のbilomaをみたが改善，術後42日目に退院した。術後2年8か月経過した現在，下肢の浮腫も消失しABZ 600mg/日を投薬中である。

症例2

患者：37歳，女性

主訴：背部の鈍痛，易疲労感

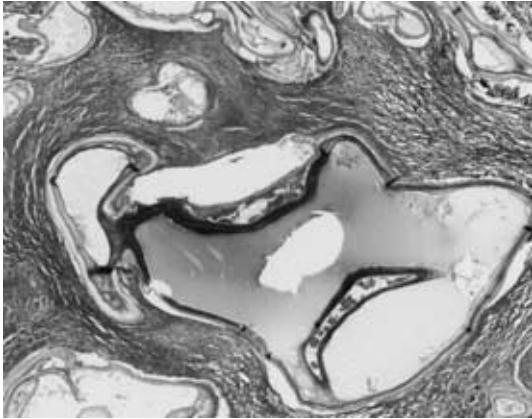
職業：主婦（北海道東部の本症多発域在住）

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：2000年8月，上記主訴出現。10月，症状増悪にて近医を受診。右心房浸潤とIVC閉塞を伴う膿瘍形成性HAEの診断で，膿瘍ドレナージ後に当科に入院（12月25日）。

入院時現症：身長 151cm，体重 54kg．血压，脈拍，体温正常．眼球結膜に黄疸なく，腹部に腫瘤を触知せず．下肢に浮腫を認めず．

Fig. 3 Microscopic finding of the resected specimen. Multiple cysts compose of cuticular layer in the dense fibrous connective tissue (H.E. staining, $\times 36$)



入院時検査所見：WBC：8,600/mm³，Hb：11.8g/dl，Ht：36.3%，Plt：21.2 $\times 10^4$ /mm³，T-bil：1.3mg/dl，GOT：26IU/I，GPT：20IU/I，LDH：336IU/I， γ -GTP：173IU/I，ALP：494IU/I，LAP：126IU/I，BUN：8mg/dl，Cr：0.6mg/dlと，胆道系酵素の上昇を認めた．血清電解質に異常なし．エキノコックス血清検査はELISA法，Western blot法ともに陽性であった．

腹部CT検査所見：石灰化部分と膿瘍化部分が混在した病巣が肝外側区から内側区に波及して，肝部IVCの閉塞と，左，中肝静脈，右心房への病変の進展があった (Fig. 4)．

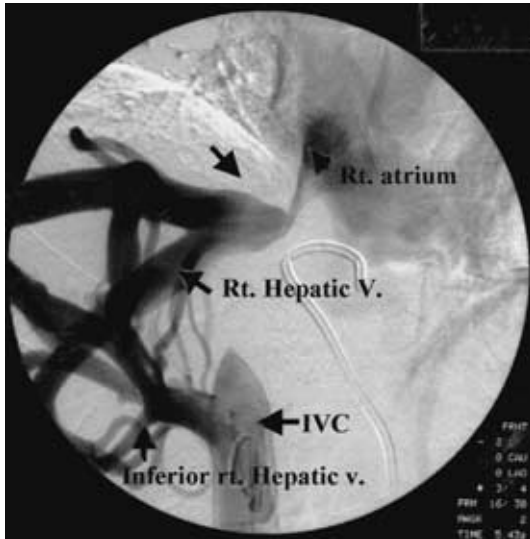
腹部MRA検査所見：IVCは完全閉塞していた．下右肝静脈から肝内の吻合枝を介し右肝静脈へ至る側副血行路を形成していた．

IVC造影検査所見：右内頸静脈と右大腿静脈を穿刺，右心房とIVC尾側から挟み撃ち造影を行った．肝部IVCの完全閉塞と側副血行路の発達，壁外からの右心房の圧迫がみられた．右肝静

Fig. 4 Abdominal enhanced CT scan of case2. Left panel ; before drainage of the cystic lesion. A low density mass was found on the right atrium (left, above) A large low attenuation cyst was found in the left hepatic lobe. The hepatic IVC was not enhanced (left, below) Right panel ; after drainage of the cyst. The left and middle hepatic vein were obstructed and the right and inferior right hepatic vein were dilated (right, above) The IVC remained obstructed (right, below)



Fig. 5 Cavagram demonstrated a complete obstruction of the retrohepatic inferior vena cava. Blood from the IVC flowed through the dilated right and inferior right hepatic vein into the right atrium. A part from the right hepatic vein to the right atrium was extremely constricted.



脈と IVC の圧は 33cmH₂O, 右心房圧は 6cmH₂O で Budd-Chiari の状態であった (Fig. 5)。

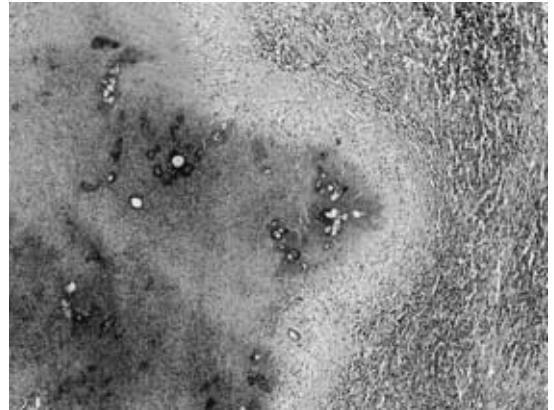
上部消化管内視鏡検査所見: 食道静脈瘤を認めず。

手術所見: 2001年1月18日に手術を施行した。IVCと門脈の圧上昇に対し、左総腸骨静脈血と下腸間膜静脈血を左腋窩静脈に送る Biopump による体外バイパスを約6時間使用した。右心房外壁と IVC 左壁へ強固に浸潤した部位で病巣の遺残を余儀なくされたが、肝左葉と右肝静脈根部周囲の病巣を切除した。

切除標本所見: 肝左葉に小嚢胞の集簇から成る病変を認めた。組織学的には壊死組織中にクチュラに囲まれた多数の小嚢胞の形成があり、辺縁部には肉芽反応を認め、最外層にはリンパ球浸潤が目立っていた (Fig. 6)。

術後経過: IVC 圧は 27cmH₂O とわずかに低下した。術後 26 日目に退院した。2年5か月経過した現在経過良好で、外来で ABZ 600mg/日を投薬中である。

Fig. 6 Histologic findings of the specimen. The inflammatory host reaction is composed of necrosis, granuloma and severe lympho-plasmacytic infiltration (H.E. staining, ×10)



考 察

多包性エキノコックス症は多包条虫 *Echinococcus multilocularis* の幼虫の寄生により、主に肝に病巣を形成し、浸潤や転移をきたす難治性の外科的寄生虫性疾患である。

ヒト(中間宿主)は、終宿主(主にキツネ)が糞便とともに排泄した虫卵を偶然に経口摂取し感染する。感染後5年から15年は無症状だが、黄疸、腹痛などを呈した時点では、高度進行例が多く、肺(約10%)、脳(約1%)、腎、骨などへ遠隔転移巣をみることもある²⁾。

おもに肝病巣の進行度が予後を規定するため、教室では北海道内に早期診断をめざしたマスキリーニング³⁾を展開し、今日までの60年余に約220例を越える HAE の外科治療を行ってきた。毎年10から20名の新患者の発生がみられ、今日でもなお漸増している。

HAE は、肝切除後の病巣遺残例でも5年生存率83%、10年生存率62%であり、ドレナージなどの姑息的処置例の5年生存率54%、10年生存率38%よりも予後が改善される^{2,4)}。

教室の IVC への浸潤、閉塞例は、過去65年間で220例中23例(10.5%)であるが、そのほとんどが肝切除不能とされてきた。

Couinaud⁵⁾は、腫瘍浸潤、閉塞する肝部 IVC

の合併切除後に、完全閉塞では側副血行路(椎骨静脈や奇静脈系など)があるので再建は不要だが、不完全閉塞では腎循環への影響から症例により再建を要するとしている。実際、IVC 浸潤には、しばしば IVC 合併切除と単純閉鎖や欠損部に応じた再建が行われる⁶⁾⁻⁹⁾。

一方、ロシアの Zhuravlev¹⁰⁾は、過去 30 年間に経験した HAE 290 例のうち IVC 浸潤を 24 例(8%)に認め、うち 15 例では完全摘出が困難であったが、IVC 浸潤が根治的摘除を断念する理由にはならないとしている。IVC の内腔が閉塞した症例の多くは奇静脈、半奇静脈などの側副血行路の発達があるとし、自験の 4 症例に IVC 切除後の再建を行っていない。今回の症例 1 でも、IVC の再建を行わなかったが、下肢の浮腫は術後に改善し、腎機能異常も軽度のまま保たれている。しかし、術中には腎静脈上部の IVC の一時的遮断による IVC 再建の必要性を検討すべき⁸⁾であろう。

また、術後 ABZ 投与群と非投与群で 5 年生存率はそれぞれ 96%、42%、10 年生存率は 92%、31% と、明らかに投与群が予後良好である²⁾。HAE 病巣は乏血性であり、拡散により薬剤が到達するため、減量手術で残存病巣を小さくすれば ABZ の効果を期待できる^{2,11)}。

症例 2 の手術は、右肝静脈根部周囲の病巣を切除して唯一の肝のドレナージ静脈の狭窄を解除すると同時に ABZ の効果向上を目指したものである。2 年を経過し、MRI で心房周囲遺残巣の軽度の縮小を確認している。

HAE はいまだ漸増傾向にあり、高度進行例も少なくない。今回の 2 症例のように、IVC 閉塞例であっても安易に手術適応外とすることなく、Bio-pump など肝移植で用いられる手技¹²⁾を駆使した積極的な切除を行うことが重要である。

文 献

1) Guidelines for treatment of cystic and alveolar

echinococcosis in humans. Bull World Health Organ 74 : 231-242, 1996

- 2) 佐藤直樹, 内野純一, 神山俊哉ほか: 多包性肝エキノコックス症の長期予後. 肝胆膵 37 : 1021-1030, 1998
- 3) Sato N, Uchino J, Suzuki K et al : IX. Mass Screening. Edited by Uchino J, Sato N. Hokkaido University Medical Library Series. Vol 30. Alveolar echinococcosis of the liver. Kokoku Printing, Sapporo, 1993, p97-114
- 4) Sato N, Aoki S, Matsushita M et al : V. Clinical Features. Edited by Uchino J, Sato N. Hokkaido University Medical Library Series. Vol 30. Alveolar echinococcosis of the liver. Kokoku Printing, Sapporo, 1993, p63-68
- 5) Couinaud C : 8 肝腫瘍の下大静脈浸潤 下大静脈切除. 二村雄次訳. 肝臓の外科解剖. 医学書院, 東京, 1996, p77-85
- 6) Iwatsuki S, Todo S, Starzl TE : Right trisegmentectomy with a synthetic vena cava graft. Arch Surg 123 : 1021-1022, 1988
- 7) 神山俊哉, 松下通明, 伊藤東一ほか: 下大静脈浸潤を伴う肝癌に対する肝切除術. 臨外(増) 56 : 224-228, 2001
- 8) Lodge JP, Ammori BJ, Prasad KR et al : Ex vivo and in situ resection of inferior vena cava with hepatectomy for colorectal metastases. Ann Surg 231 : 471-479, 2000
- 9) Miyazaki M, Ito H, Nakagawa K et al : Aggressive surgical resection for hepatic metastases involving the inferior vena cava. Am J Surg 177 : 294-298, 1999
- 10) Zhuravlev VA : Surgical treatment of hepatic alveococcosis (30-year experience) Edited by Uchino J, Sato N. Alveolar echinococcosis. Fujishoin, Sapporo, 1996, p299-312
- 11) Ishizu H, Uchino J, Sato N et al : Effect of albendazole on recurrent and residual alveolar echinococcosis of the liver. Hepatology 25 : 528-531, 1997
- 12) Starzl TE, Iwatsuki S, Shoen BW et al : Analysis of liver transplantation. Hepatology 4 : 47S-49S, 1984

Two Cases of Hepatic Alveolar Echinococcosis with Complete
Obstruction of the Inferior Vena Cava

Masao Sunahara, Toshiya Kamiyama, Naoki Sato, Nobuaki Kurauchi, Toichi Ito,
Hisashi Okubo, Tomoya Katayama, Michiaki Matsushita and Satoru Todo
First Department of Surgery, Hokkaido University School of Medicine

Hepatic alveolar echinococcosis, a parasitic disease, occasionally obstructs the inferior vena cava (IVC) if allowed to progress too far. We previously only drained the infected lesion in such cases. We report 2 cases of alveolar echinococcosis with obstruction of the retrohepatic IVC treated by hepatic resection with or without IVC resection. Case 1 : A 71-year-old woman was admitted and diagnosed with hepatic alveolar echinococcosis occupying almost the entire liver, except for the left lateral segment, with obstruction of the retrohepatic IVC. She underwent right hepatic trisegmentectomy and resection of the obstructed suprarenal IVC, with the lesion completely successfully removed. The IVC was not reconstructed due to the presence of large collateral veins. She remains well for 2 years and 8 months since surgery under albendazole treatment. Case 2 : A 37-year-old woman referred for alveolar echinococcosis in the left hepatic lobe with IVC obstruction and invasion near the right atrial orifice, underwent left hepatic lobectomy with venous bypass. Although we had planned to remove and reconstruct the IVC, we left the IVC in place with some residual lesion because the IVC and external right atrial wall were markedly affected by the disease. The patient remains well under albendazole treatment. An aggressive surgical approach is necessary in treating highly advanced alveolar echinococcosis to ensure a complete cure. Even in incomplete resection, reducing the lesion significantly improves the quality of life and prolongs survival under albendazole administration.

Key words : hepatic alveolar echinococcosis, inferior vena cava, hepatectomy

[Jpn J Gastroenterol Surg 37 : 165 170, 2004]

Reprint requests : Masao Sunahara First Department of Surgery, Hokkaido University School of Medicine
Kita-15 Nishi-7, Kita-ku, Sapporo, 060 8638 JAPAN
