

症例報告

術前診断に苦慮した胆管過誤腫の一例

堀 佑太郎¹⁾、原田 敦¹⁾、永嶺 彩奈¹⁾、渡部 可那子¹⁾、森岡 三智奈¹⁾、岡本 三智夫¹⁾、高村 通生¹⁾、武田 啓志²⁾、金澤 旭宣¹⁾、橋本 幸直²⁾、徳家 敦夫¹⁾

1) 島根県立中央病院 外科

2) 島根県立中央病院 乳腺科

A case of von Meyenburg complex that was difficult to make preoperative diagnosis.

Yutaro HORI¹⁾, Atsushi HARADA¹⁾, Ayana NAGAMINE¹⁾, Kanako WATANABE¹⁾, Michina MORIOKA¹⁾, Michio OKAMOTO¹⁾, Michio TAKAMURA¹⁾, Hiroshi TAKEDA²⁾, Akiyoshi KANAZAWA¹⁾, Kouji HASHIMOTO²⁾ and Atsuo TOKUKA¹⁾

1) Department of Surgery, Shimane Prefectural Central Hospital

2) Department of Breast Oncology, Shimane Prefectural Central Hospital

要 旨：

症例は 70 歳代の男性。胃癌に対して ESD を施行、非治癒切除につき外科的切除を考慮したが本人希望で経過観察となっていた。1 年後に FDG-PET を撮影したところ肝 S4/5 に FDG の集積を認め、胃癌肝転移が疑われ精査。肝生検では炎症細胞浸潤が見られるのみで悪性所見は認めなかったが悪性疾患を完全に否定出来なかったため、診断的治療のため肝部分切除を施行した。術後経過に問題なく、術後 7 日目に退院。摘出標本の病理学的検討では標本内に胆管過誤腫を認め、その周囲でリンパ球や形質細胞などの慢性炎症細胞浸潤を伴っており、炎症性偽腫瘍を思わせる所見であった。転移性肝癌や肝内胆管癌などの悪性所見は認めず、炎症の原因に関しては不明であった。

一般に胆管過誤腫は FDG-PET 陽性とはならず、背景にあった炎症性偽腫瘍への集積の影響と思われた。術前診断に苦慮した胆管過誤腫を経験したので考察を加えて報告する。

索引用語：

胆管過誤腫、FDG-PET、炎症性偽腫瘍

Key Words：

von Meyenburg complex, FDG-PET, inflammatory pseudotumor

【はじめに】

胆管過誤腫(von Meyenburg complex)とは胆管壁組織の遺残より発生する胆道系との交通を持たない嚢胞性病変で、剖検例では0.69~5.6%に認められ、無症候性に画像診断等で発見されることが多い。通常胆管過誤腫はFDG-PET陽性となることはない。今回胃癌ESD後のフォロー中、FDG-PET陽性を契機に発見され、術前診断に苦慮した胆管過誤腫症例を経験したので報告する。

【症例】

70歳代男性。

主訴：無症状。

現病歴：2015年3月に胃癌に対してESD(pT1b2(SM2:3300 μ m), tub2>tub1)を施行。非治癒切除のため外科的切除を考慮されたが、本人希望にて1年間経過観察となった。胃癌ESD後のフォロー目的に2016年3月撮影したFDG-PETで肝に15mmの腫瘤影を認めFDG集積あり。肝生検の結果炎症細胞浸潤のみで悪性所見は認めなかったが、病歴及び画像所見より胃癌肝転移などの悪性所見を完全に否定出来ず、診断的治療目的に当科紹介となった。

既往歴・併存疾患：完全内臓逆位、洞不全症候群、発作性心房細動、狭心症、高血圧、多発性脳梗塞

内服薬：ワーファリン、アムロジピン、プラバスタチン、ラベプラゾール、ベラパミル、メコバラミン

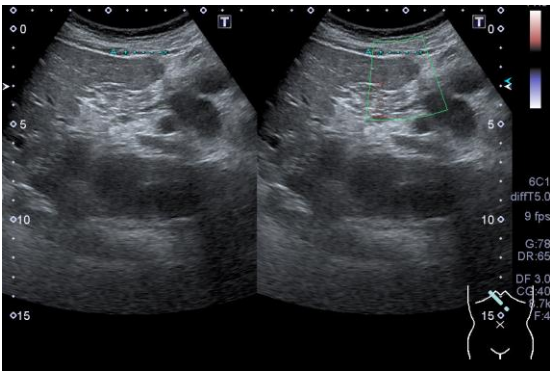
入院時身体所見：腹部平坦軟、腸雑音良好、腫瘤なし、手術痕なし。

血液生化学検査：黄疸や肝胆道系酵素上昇なし。凝固系はPT-INR4.96、APTT61.4秒と延長あり。またHb11.1g/dlと軽度貧血を認めた。感染症や腫瘍マーカーの上昇なし。Indocyanine green試験(以下、ICG試験)ではICG消失率0.159、ICG15分値11.9であった(表1)。

WBC	3480 / μ L	LDH	175 U/L
Hb	11.1 g/dl	γ -GTP	14 U/L
PLT	20.3 $\times 10^4$ / μ l	UN	14.8 mg/dl
PT活性	13 %	Cre	0.72 mg/dl
PT-INR	4.96	アンモニア	43 μ g/dl
APTT	61.4 秒	Na	141.5 mmol/l
		K	3.7 mmol/l
TP	6.5 g/dl	Cl	108.4 mmol/l
ALB	3.4 g/dL	CRP	0.04 mg/dl
T-Bil	0.7 mg/dl	AFP	2.6 ng/ml
ALP	170 U/L		
AST	21 U/L	ICG消失率	0.159
ALT	23 U/L	ICG15分値	11.9

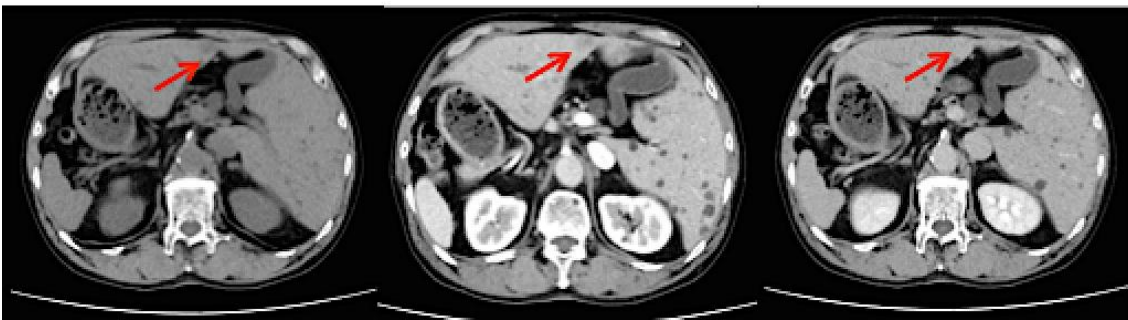
(表1): Clinical laboratory data on admission

腹部超音波検査：肝両葉に嚢胞が散在。肝S4表面に境界が非常に不明瞭な腫瘤影あり。内部の血流は認めなかった。(図1)



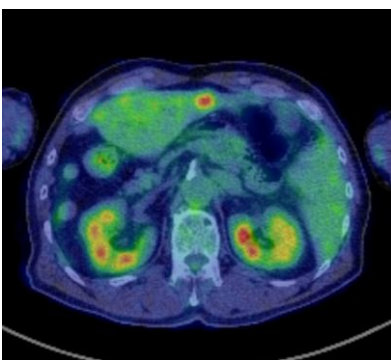
(図 1): 肝 S4 表面に境界が非常に不明瞭な腫瘤影あり。内部の血流は認めず。

腹部造影 CT : 完全内蔵逆位。肝 S4/5 の辺縁に 17×17mm の境界不明瞭な腫瘤あり、単純 CT 及び動脈~門脈相で低吸収、平衡相では周囲より僅かに濃染を認めた。腹腔内に有意なリンパ節腫大は認めず(図 2)。



(図 2): 肝ダイナミック CT。肝 S4/5 の辺縁に 17×17mm の境界不明瞭な腫瘤あり、単純 CT 及び動脈~門脈相で低吸収、平衡相では周囲より僅かに濃染あり。

FDG-PET : 肝 S4 に 15mm 大の SUV-max 3.904 の FDG 集積を伴う低吸収腫瘤あり。その他の部位には有意な FDG 集積は認めなかった(図 3)。



(図 3): FDG-PET。肝 S4 に 15mm 大の SUV-max 3.904 の FDG 集積を伴う低吸収腫瘤あり。

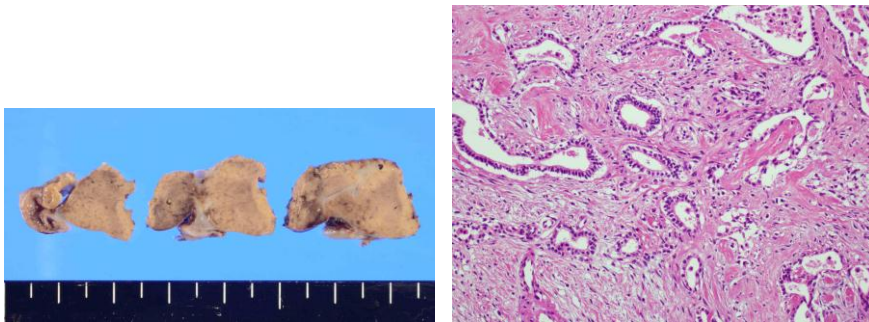
経皮的肝生検 : 種々の炎症細胞浸潤を伴う反応性細胆管増生、線維化を認め、僅かに粘液性円柱上皮からなる腺管を認めるも異型なし。免疫染色では CA19-9、p53 が一部の反応性増生する細胆管で陽性だが、IMP3 や CDX2 陽性細胞は認めず、検体内で悪性所見は見られなかつ

た。

入院後経過：臨床経過や画像診断からは胃癌肝転移を含めた悪性腫瘍の可能性が否定出来ず肝生検でも確定診断がつかなかったことから、診断的治療目的に外科入院となった。発作性心房細動に対してワーファリン内服、洞機能不全症候群のためペースメーカー使用中であったが肝機能は Child-Pugh8 点、肝障害度 A と良好であり、開腹下に肝部分切除術を行う方針とした。

手術所見：上腹部正中切開で開腹。肝には多発する嚢胞あり。術中超音波にて肝 S3 および S4 の境界に約 1cm 大の僅かに低エコーの領域を認め目的とする腫瘍と判断し、部分切除術を施行した。

病理検査所見：肝被膜下に 5 mm 程度の範囲で炎症性変化を伴う胆管性過誤腫を認め、周囲にリンパ球や形質細胞などの慢性炎症細胞の浸潤があり炎症性偽腫瘍を疑わせる所見あり。胆管上皮は IMP3 や p53 (PAb1801) は陰性で肝内胆管癌は否定的、明らかな悪性所見は認めなかった(図 4)。



(図 4)：摘出標本。胆管過誤腫を認め、背景に炎症性偽腫瘍を思わせる慢性炎症細胞浸潤あり。

術後経過：術後 1 日目より飲水、2 日目より食事を開始。出血や胆汁漏などの合併症なく経過し、術後 7 日で退院となった。

【考察】

本症例は胃癌に対する ESD 非治癒切除後のフォロー中に肝臓に FDG-PET にて集積を認め、各種画像検査より悪性腫瘍が否定出来ず診断的治療目的に手術に至ったものである。摘出標本の病理学的検索では胆管過誤腫(von Meyenburg complex)と炎症性偽腫瘍を思わせる慢性炎症細胞浸潤を認めた。

胆管過誤腫は過去の報告では剖検例の 0.69~5.6%に認めるとされており、比較的頻度の稀な疾患と考えられる¹⁾。1906 年に Moschowitz により最初に報告がなされ²⁾、その後 von Meyenburg により胆管過誤腫としての概念が提唱された³⁾。門脈域グリソン鞘周囲の嚢胞状拡張、胆管増生と線維性間質からなる良性的過誤腫性病変で一般に無症候性に経過し、画像診断や肝生検等で偶然に指摘される場合が多い。典型的には肝両葉に数 mm から 10mm 程度までの小さな嚢胞が散在し、内部には濃縮された胆汁成分を含み、肉眼的には灰白色の小結節病変として確認できる⁴⁾。

単純 CT では境界不明瞭な低吸収領域となり、造影にて嚢胞はより明瞭化する⁵⁾。FDG-PET では一般に集積は認めない。

一方炎症性偽腫瘍は肺や眼窩などに好発するとされ肝腫瘍では比較的稀であり、本疾患の原因として感染や自己免疫学的機序が推測されている⁶⁾。肝に発生する炎症性偽腫瘍の予後は良好で⁷⁾、超音波腫瘍生検にて炎症性偽腫瘍と診断し無治療経過観察にて自然消退を認めた症例も報告されている⁸⁾。

本症例では胆管過誤腫を背景とした肝に、原因は不明であるが炎症性偽腫瘍が生じ、炎症性偽腫瘍に対して FDG-PET 陽性となったものと推測される。術前の画像診断では同部位に胆管過誤腫を示唆する画像所見は認めず、病理診断にて初めて診断された。術前の肝生検では炎症細胞浸潤を疑う所見が見られ、これが炎症性偽腫瘍を疑うきっかけとなり得たものの、病歴や画像診断より悪性腫瘍を完全に否定出来ず手術に至った。前述の通り胆管過誤腫、炎症性偽腫瘍共に良性疾患で、炎症性偽腫瘍に関しては自然消退も期待出来ることからもうしばらく経過観察することで手術を回避することも可能ではなかったかと思われた症例であった。

【結語】

胃癌 ESD 後に FDG-PET 陽性を契機に発見され、最終診断に至るまでに苦慮した胆管過誤腫の 1 例を経験した。

【利益相反】

明示すべき利益相反なし。

【参考文献】

- 1) Chun EB, et al : Multiple bile-duct hamartomas. Cancer, 1970 ; 26 : 287-296
- 2) Moschcowitz E, et al : Non-parasitic cysts (congenital) of the liver. Am J Med Sci , 1906 ; 131 : 674-699
- 3) von Meyenburg H, et al : Uber die Cystenleber. Beiter Pathol Anat, 1918 ; 64 : 477-532
- 4) Nakamura Y, et al : Non-neoplastic nodular lesions in the liver. Pathol int, 1995 ; 45 : 703-714
- 5) 則武秀尚, 影山富士人, 小林良正, 他 : 多発肝膿瘍と鑑別を要した胆管過誤腫の 1 例. 肝臓, 2007 ; 48(8) : 370-376
- 6) 敷島裕之, 坂入隆人, 塚田守雄, 他 : 肝の inflammatory pseudotumor の 1 例. 日臨外誌, 1993 ; 54 : 489-493
- 7) 須郷広之, 渡辺繁, 行方浩二, 他 : 肝の inflammatory pseudotumor の 1 例. 日臨外誌, 1996 ; 57 : 931-937
- 8) 岡野淳一, 岡本欣也, 村脇義和, 他 : 自然消退した肝の炎症性偽腫瘍の 1 例. 肝臓, 2004 ; 45(2) : 121-124