

—症例報告—

術前診断が困難であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1症例

石田 隆志¹ 橋本 大定¹ 赤松 延久¹ 小澤 文明¹ 田丸 淳一²¹埼玉医科大学総合医療センター肝胆膵・小児外科, 埼玉²埼玉医科大学総合医療センター病理部, 埼玉

A Case of Xanthogranulomatous Cholecystitis with Difficulty in Preoperative Diagnosis

Takashi Ishida¹, Daijo Hashimoto¹, Nobuhisa Akamatsu¹,
Fumiaki Ozawa¹ and Junichi Tamaru²¹Department of Hepato-Biliary-Pancreatic and Pediatric Surgery, Saitama Medical Center, Saitama Medical University²Department of Diagnostic Pathology, Saitama Medical Center, Saitama Medical University

Abstract

A 72-year-old woman was referred to our hospital with jaundice, right hypochondrial pain, and fever. Enhanced computed tomography revealed a greatly thickened gallbladder wall, a large gallstone (Φ33 mm), and encasement of the right hepatic artery. Percutaneous transhepatic cholangiography revealed severe stenosis extending from the hilar bifurcation of the bile ducts to the common bile duct. Pathological examination of the gallbladder wall during surgery for gallstone ileus carried out 4 days after percutaneous transhepatic portal vein embolization led to a final diagnosis of xanthogranulomatous cholecystitis. Physicians need to be alert to the possibility of xanthogranulomatous cholecystitis, which is difficult to differentiate from advanced gallbladder cancer.

(日本医科大学医学会雑誌 2012; 8: 157-161)

Key words: xanthogranulomatous cholecystitis, gallbladder cancer, percutaneous transhepatic portal vein embolization, gallstone ileus

緒言

黄色肉芽腫性胆嚢炎(xanthogranulomatous cholecystitis; 以下XGC)は胆嚢壁の著明な肥厚を伴うまれな胆嚢炎で、画像診断上、悪性腫瘍に類似し胆嚢癌との鑑別診断が困難な疾患である。われわれは、術前、胆嚢癌の肝門部浸潤の診断にて、拡大右肝切除を予定し経皮経肝門脈塞栓術(Percutaneous transhepatic portal vein embolization, 以下PTPE)

まで施行したが、PTPE後4日目に発症した胆石イレウスの緊急手術の際に施行した病理診断にてXGCであることが判明し、拡大手術を回避できた症例を経験したので報告する。

症例

患者: 72歳 女性
主訴: 右季肋部痛, 発熱
家族歴: 特記すべきことなし

Correspondence to Takashi Ishida, Department of Hepato-Biliary-Pancreatic and Pediatric Surgery, Saitama Medical Center, Saitama Medical University, 1981 Kamoda, Kawagoe, Saitama 350-8550, Japan

E-mail: isd007@hotmail.com

Journal Website (<http://www.nms.ac.jp/jmanms/>)

既往歴：55歳時より，高血圧，めまいを指摘され服薬中。

現病歴：2週間前に，発熱と腹痛にて前医に入院。



図1 腹部CT（門脈層）：胆嚢壁は全周性に10 mmの肥厚を認め，胆嚢内に径33 mm大の胆石を認めた。胆嚢壁内には，一部微小な低吸収域を認めた（矢印）。

前医にて胆石，胆嚢炎の診断となったが胆嚢壁の肥厚が著明で胆嚢癌も否定できず，T.Bil値も7.4 mg/dLと黄疸も認めたため当科に転院した。

入院時現症：身長149 cm，体重44.6 kg，血圧100/53，体温37.3℃，眼瞼結膜に黄疸を認めた。腹部は，平坦，軟で右季肋部に軽度の圧痛を認めた。

入院時血液検査：AST 59 U/L，ALT 44 U/L，ALP 797 U/L， γ GTP 111 U/L，T.Bil 4.4 mg/dL，CRP 3.4 mg/dLと高値であった。腫瘍マーカーはいずれも基準値以下であった。

腹部CT所見：胆嚢壁は全周性に約10 mmと肥厚を認め，胆嚢内に径33 mm大の胆石を認めた。胆嚢壁内には，一部微小な低吸収域を数個認めた。胆嚢頸部病変による総胆管の圧排または浸潤による肝内胆管の拡張を認めた（図1）。

Multi planar reconstruction（以下MPR）では，胆管の狭窄は滑らかで拡大した胆嚢頸部の圧排によるものにも見えたが胆嚢癌も否定できなかった（図2A）。

Maximum intensity projection（以下MIP）では，

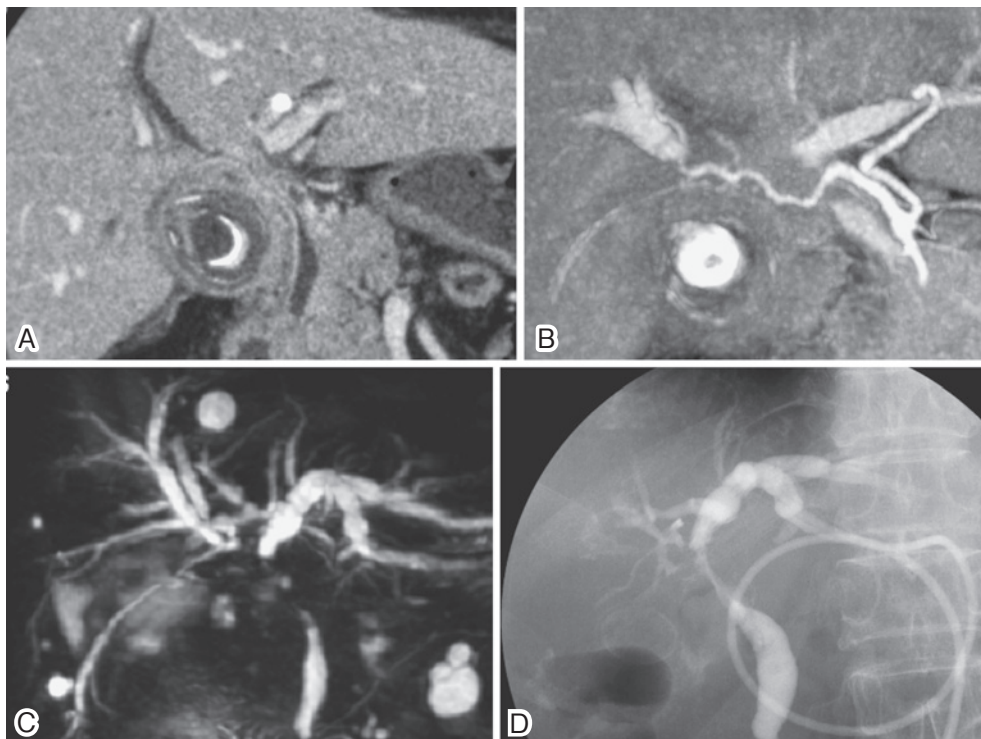


図2

- A CT（MPR）：胆管の狭窄は滑らかで胆嚢頸部からの圧排によるものにも見えたが胆嚢癌は否定できなかった
- B CT（MIP）：右肝動脈は口径不同があり，胆嚢癌の浸潤を強く疑った
- C MRCP：上部胆管から左右肝管分岐部までの狭窄を認めた
- D PTBD造影：右肝管はほとんど造影されず，右肝管，左肝管根部の壁は不整に狭窄し，肝門部での“泣き別れ”に近い胆管狭窄を認めた

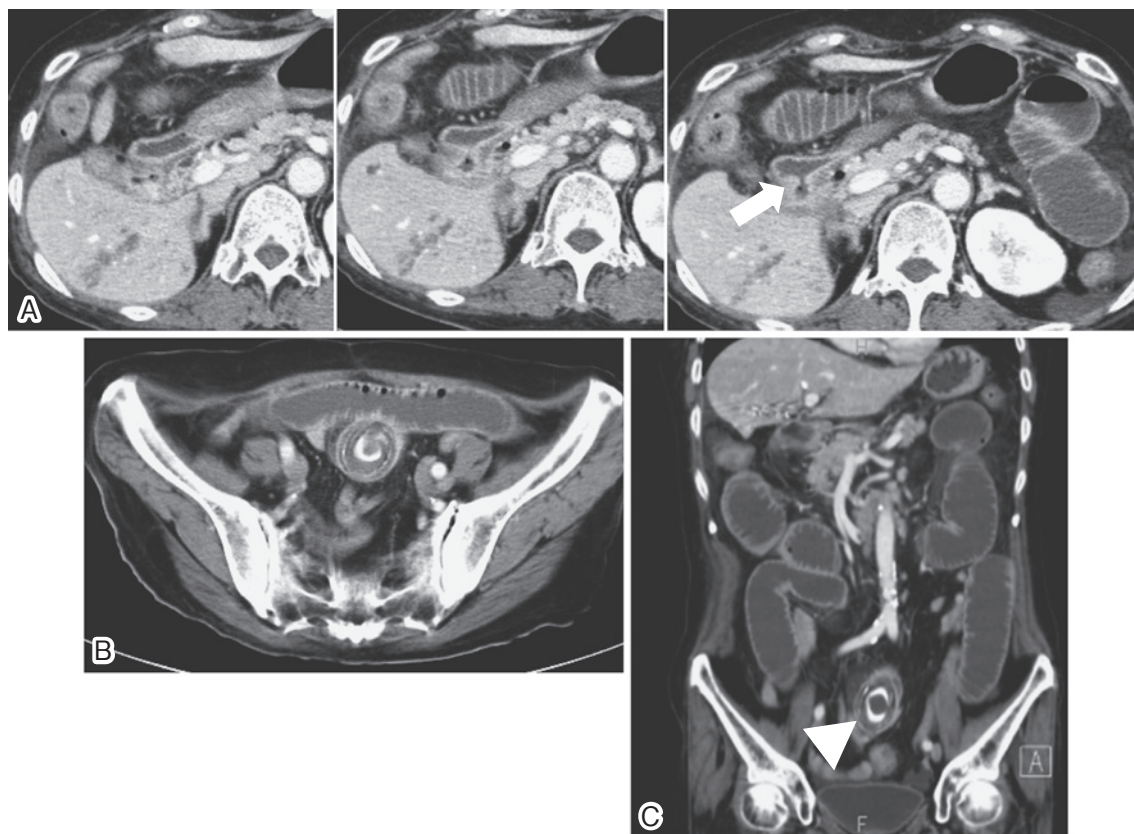


図3 腹部造影CT

- A 胆嚢内には air を認め、胆嚢と十二指腸下降脚に瘻孔を認めた (矢印)
 B, C 回腸に胆石が落石し (矢頭)、口側の小腸が著明に拡張していた

病変のすぐ頭側を右肝動脈が走行しており、口径不同を認め、胆嚢癌の右肝動脈への浸潤を強く疑った (図 2B)。

MRCP 所見：上部胆管から左右肝管分岐部までの狭窄を認めた (図 2C)。

入院後、塞性黄疸に対し、PTBD を留置した。

PTBD 所見：PTBD から造影してみると右肝管はほとんど造影されず、右肝管、左肝管根部の壁は不整に狭窄し、肝門部での“泣き別れ”に近い胆管狭窄であることより、胆嚢癌の浸潤を疑った。胆汁細胞診は、2 回とも class 1 であった (図 2D)。

以上より、判断には難渋したが、総合的にみて、胆嚢癌の肝門浸潤と診断した。

また、胆嚢炎だとしても胆管狭窄の根治のためには、右肝切除が必要と判断し、CT volumetry にて右肝：左肝 = 64% : 36%、ICG-R15 13% であったので、術前に PTPE を施行した。

ところが、PTPE 後 4 日目で突然イレウスを発症。CT 検査を施行したところ、胆嚢と十二指腸下降脚に瘻孔が形成され、回腸に胆石が落石し、口側の小腸の著明な拡張が認められた (図 3)。

胆石イレウスの診断にて、緊急で開腹手術を施行した。

施行手術：胆嚢十二指腸瘻剝離、十二指腸瘻孔縫合閉鎖、腹腔側胆嚢壁部分切除術

緊急手術時の所見：上腹部正中切開にて開腹。回腸末端から 100 cm の回腸に胆石を触知した。回腸を切開し、術前に、胆嚢内に存在していた 33 mm 大の結石を摘出した。上腹部胆嚢周囲は特に広範な租密癒着で手もつけられない状態であり、肝切除を緊急で施行するのは無理だと判断した。十二指腸下行脚と胆嚢底部は瘻孔を形成していたので、切り離して縫合した。次に、胆嚢底部の壁の一部を切除し、術中迅速病理診断に提出した。結果は、切除された組織では、悪性所見なしであった。残存した頸部は、縫合閉鎖した (図 4A, B)。

病理組織学的検査：粘膜のビロード状の構造が消失し、粘膜から粘膜下層にかけて広範な出血が観察され、筋層は過形成性に、漿膜下は線維性に、肥厚していた (HE 対物×20) (図 4C)。

肥厚した胆嚢壁内に、コレステリンの針状結晶を貪食した多核巨細胞と泡沫細胞を認め、背景にはリンパ

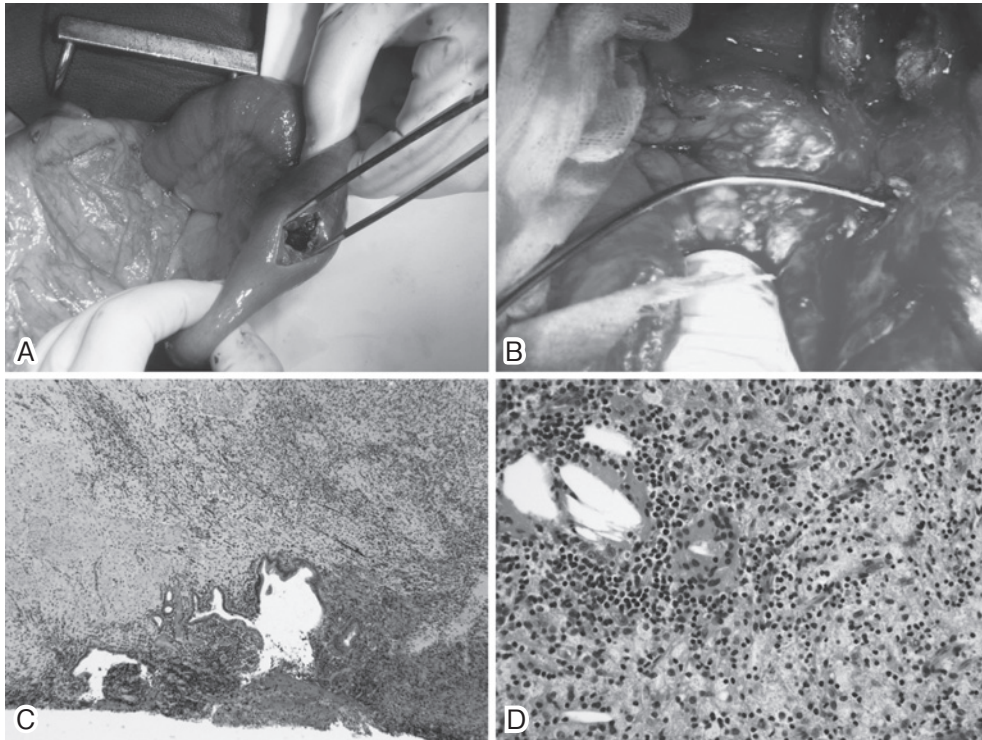


図 4

術中写真：

A 胆石を取り出した

B 十二指腸下行脚に瘻孔を認めた

病理組織学的所見：

C 粘膜のピロード状の構造が消失し、粘膜から粘膜下層にかけて出血も見られ、筋層は過形成性に、漿膜下は線維性に、肥厚していた

D 肥厚した胆嚢壁内に、コレステリンの針状結晶を貪食した多核巨細胞と泡沫細胞を認め、背景にはリンパ球の浸潤も認めた

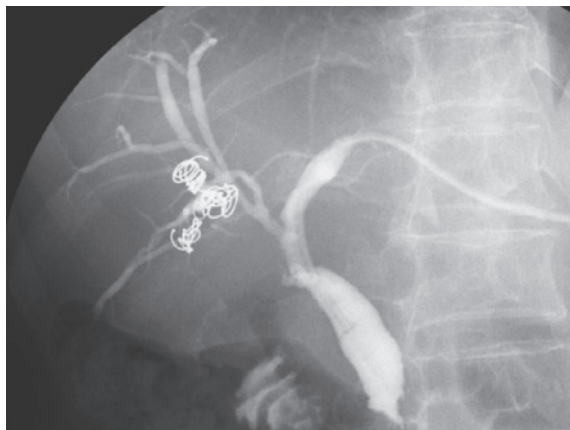


図 5 術後 4 週目の PTBD 造影所見：胆管狭窄の著明な改善を認めた

球の浸潤も認め、XGC と診断した。悪性所見は認められなかった (HE 対物 $\times 200$) (図 4D)。

術後経過：正中創の創感染を合併したが術後経過はおおむね良好であった。また、術後 4 週目の胆管造影では胆管狭窄は著明に軽快しており、術後 5 週で

PTBD チューブを抜去し、外来通院とした (図 5)。

術前には、胆嚢癌と診断したが、結果的には臨床経過からすると、良性である XGC であった。残った胆嚢頸部に癌がある可能性もあり、また、XGC から発癌の可能性を考慮し残存胆嚢の切除手術をすすめたが、希望しなかったため、慎重に経過を観察することとした。2 年後の現在、肝右葉の軽度萎縮はあるものの、発癌を疑う所見もなく、肝機能はほぼ正常範囲にて特段の愁訴なく経過している。

考 察

XGC は胆嚢壁内脂肪沈着を伴う胆嚢炎であり、胆嚢癌の合併率が高いことと、進行胆嚢癌との鑑別が困難であることで注目されている疾患である。1948 年に Weismm らにより初めて報告されて以来¹、数多く報告されているが、胆嚢癌との合併率は、6.0~8.0% と指摘されている²³。また、全胆嚢摘出例の 1.8~4.7% に、XGC を認めると報告されている³。発生機序は、

胆石の胆嚢管の閉塞などにより、内圧の上昇とともに、Rokitansky-Ashoff sinus (以下:RAS) から胆嚢壁内に胆汁が流入し、これを組織球が貪食し、次いで xanthoma cells よりなる肉芽腫が形成され、異物性炎症、線維化へと進んでいくものと考えられている。このため XGC のほとんどの症例で嵌頓の原因となる胆石を認める。

XGC に特異的な画像所見はなく⁴、胆嚢癌との鑑別は困難であるが、画像診断では造影 CT が有用であるとの報告が多い。北川らは、① contrast enhancement CT における胆嚢粘膜面の一様な濃染像 ② 壁内の low density mass の存在が癌との鑑別に有用であると報告している。壁内の low density mass は、RAS 内のたまりであると指摘されており、自験例においても、CT で確認されている。

本症例では、胆汁細胞診が2回とも class 1 であり、CT 所見より「胆嚢癌か?胆石胆嚢炎か?」の鑑別診断は困難であったが①胆嚢頸部を中心として胆嚢壁の肥厚が著明で、右肝動脈に encasement を認めたこと ②肝門部での“泣き別れ”に近い胆管狭窄をみとめたことより、胆嚢癌の可能性が高いと考えた。胆嚢部分切除の標本からは、悪性所見はなく、また、術後、胆管狭窄も急速に改善してはいるが、同一胆嚢内に XGC と胆嚢癌が併存するという報告もあり⁵、術前、癌と診断され切除標本で初めて XGC と診断される症例も少なくなく、本邦だけでも 10 例以上であることも考慮すると^{6,7}、今後、本症例でも残存頸部に悪性腫瘍が発生する可能性もあり、慎重な経過観察が必要である。

結 論

胆嚢癌との鑑別診断に苦慮したが、胆石イレウスの緊急手術の際の術中病理組織診で黄色肉芽腫性胆嚢炎と診断した一例を経験したので報告した。XGC では、癌が併存する可能性も十分念頭に入れ慎重に判断することが望まれる。

文 献

1. Weismann RE, McDonald JR: Cholecystitis. A study of intramural deposits of lipids in twenty three cases. Arch Pathol 1948; 45: 639-657.
2. 柴田 高, 高見元敏, 藤本高義ほか: 臨床病型から見た Xanthogranulomatous cholecystitis (黄色肉芽腫性胆嚢炎). 日臨調医学会誌 1993; 54: 2009-2013.
3. 北川 晋, 中川正昭, 山田哲司ほか: 黄色肉芽腫性胆嚢炎の臨床病理学的検討. 日外会誌 1990; 91: 1001-1011.
4. Goshima S, Chang S, Wang JH, Kanematsu M, Bae KT, Federle MP: Xanthogranulomatous cholecystitis: diagnostic performance of CT to differentiate from gallbladder cancer. Eur J Radiol 2010; 74: 79-83.
5. 門野 潤, 浜田信男, 海江田衛ほか: 黄色肉芽腫性胆嚢炎と胆嚢癌が併存した1例. 日消外会誌 2001; 34: 605-609.
6. 播本憲史, 足立英輔, 藤也寸志, 池田 貯, 坂口善久, 岡村 健: 胆嚢癌との鑑別が困難であった炎症が他臓器へ波及した黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 日臨外会誌 2009; 70: 179-183.
7. 二川康郎, 恩田真二, 藤岡秀一, 岡本友好, 矢永勝彦: 広範な肝内グリソン鞘への炎症を伴い進行胆嚢癌との鑑別に難渋した黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 胆道 2008; 22: 544-550.

(受付: 2012年1月27日)

(受理: 2012年2月24日)