臨床 多発性嚢胞症に傍リンパ管嚢胞を合併した 1 例

腹腔鏡下に無水エタノール注入で治療した傍胆管リンパ管嚢胞

大阪労災病院内科

西野雅巳[◇] 江角 章 鄭 英樹 広瀬順弥 山本佳司
大橋 誠 田中道夫 岸田 隆 明山耀久 志水洋二

概要 症例は76才女性で、近医で胆嚢腫大を指摘され精査目的にて来院し腹部超音波検査にて総胆管嚢胞の疑いにて入院した。CT, DIC, ERCP, 胆道シンチ, 腹腔動脈造影を施行したが、肝嚢胞と総胆管嚢胞との鑑別が困難で腹腔鏡を施行した。病変は胆嚢内側のリンパ管嚢胞であり、造影剤を注入し、リンパ管との交通を確認した。この嚢胞に対し超音波下に無水エタノール注入を施行したところ、1週間後に縮小傾向を示し、2カ月後には腹部超音波検査上消失した。本症例は他に肝嚢胞、腎嚢胞もありpolycystic diseaseの一分症として傍胆管リンパ管嚢胞が発症したものと考えられるが、文献上他にこのような報告はなく、極めてまれな症例と思われる報告した。
〔日内会誌 77:1446~1449, 1988〕

はじめに

多発性嚢胞症は常染色体優性遺伝で肝、腎、肺などにおこる全身性嚢胞症であるが、傍胆管リンパ管嚢胞を合併したという報告はない。今回我々は多発性嚢胞症にその一分症として傍胆管リンパ管嚢胞を合併した1症例を経験し、その嚢胞に超音波ガイド下にエタノール注入を行い著効が認められたので若干の考察を加えて報告する。

症 例

患者： 76才、主婦。

主訴： 腹部腫瘤。

家族歴： 父： 胃癌にて死亡。

既往歴： 昭和36年より高血圧にて治療を受けている。

現病歴： 昭和60年12月上旬に感冒様症状を訴え近医を受診したところ、胆嚢腫大を指摘され手術を勧められた。しかし腹痛、発熱等はみられず放置していた。昭和61年4月精査希望にて当院内科を受診し、腹部超音波検査にて肝右葉下方内側

に約5cmの大きな嚢胞があり、位置的に総胆管嚢胞が疑われた(図1)。又、肝左葉にも約3cmの肝嚢胞が存在した。精査目的のため5月6日入院した。

入院時現症： 身長140cm, 体重35kg, 結膜に貧血、黄疸なく、心肺共に異常を認めなかった。腹部では肝を右季肋下に4cm触知し、その内側に腫瘤様のものを触知したが、圧痛はなかった。表在リンパ節は触知しなかった。

入院時検査所見(表1)： 黄疸なく肝機能正常。又、胆道系酵素の上昇もなく腫瘍マーカーも正常範囲であった。

入院後経過： 腹部CTでも肝門部付近に大きな表面平滑な嚢胞があり造影剤を用いても増強されず、腹部超音波検査と同様、総胆管嚢胞が疑われた(図2)。総胆管嚢胞か否かを鑑別するためにERCPを施行したが、種々の方向より挿管するも総胆管以下が造影されず膵管のみが造影され、問題の嚢胞についての所見は得られなかった(図

〔昭和63年1月29日受稿〕

A case of a para bile duct lymphcyst with polycystic disease: A para bile duct lymphcyst which was treated with pure ethanol injection after ultrasonic drainage

Masami NISHINO, Akira EZUMI, Hideki TEI, Junya HIROSE, Keiji YAMAMOTO, Makoto OHASHI, Michio TANAKA, Takashi KISHIDA, Teruhisa AKEYAMA and Yoji SHIMIZU, The Department of Internal Medicine, Osaka Rosai Hospital, Osaka

図 1. 腹部超音波像. 肝右葉下方に矢印の様な嚢胞が認められた.

図 3. ERCP像. 矢印の様に膵管壁がやや不整で慢性膵炎を疑わすが, 総胆管以下末梢は造影されなかった.

図 2. 腹部CTスキャン. 矢印の様に肝右葉下方内側に嚢胞が認められた.

図 4. 胆道シンチ. $^{99m}\text{Tc-E-HIDA}$ 静注30分後の像であるが, 矢印の様に問題の嚢胞には $^{99m}\text{Tc-E-HIDA}$ の集積は認められなかった.

図 5. 総肝動脈造影像. 上段: 動脈相, 下段: 静脈相, 矢印が問題の嚢胞を示す.

図6. 腹腔鏡像。左上段：矢印が傍胆管リンパ管囊胞を示す。肝は慢性肝炎の所見であった。左下段：矢印は胆嚢壁に沿って見られたリンパ管，右上段：囊胞に造影剤を注入している所，左下段：矢印は囊胞への造影剤注入後に拡張したリンパ管。

表1. 入院時検査成績

①検血		ZTT	6 U
RBC	426 × 10 ⁴ /mm ³	T BIL	0.5 mg/dl
Hb	12.8 g/dl	GOT	25 IU/l
Ht	37.4 %	GPT	17 IU/l
WBC	6000 /mm ³	LDH	202 IU/l
Platelet	20.3 × 10 ⁴ /mm ³	ALP	7 KAU
		γ-GTP	42 IU/l
②血清学的検査		LAP	37 IU/l
CRP	(-)	Amylase	203 U
RA	(-)	BUN	18 mg/dl
CEA	1.2 ng/ml	Creatinine	1.0 mg/dl
CA19-9	6 U/ml以下	④検尿	
α-feto	0 ng/ml	protein	(-)
③血液生化学的検査		sugar	(-)
TP	0.5 mg/dl	urobilinogen	(-)
alb	61.0 %	⑤検便	
α ₁ -gl	2.5 %	潜血反応	
α ₂ -gl	8.3 %	Guaiac	(±)
β-gl	8.8 %	Hematest	(+)
γ-gl	19.4 %		

3). 又, DICも行なったが, 総胆管は造影不良で, 問題の囊胞病変は写し出されなかった。そこで囊胞と胆道の交通の有無を確かめるために胆道シンチを施行した。肝への^{99m}Tc-E-HIDAの摂取障害, 遅延などは認められず, 問題の囊胞病変には^{99m}Tc-E-HIDAの集積がなく, ほぼ円形の欠損像を示した(図4)。以上より胆道と囊胞の交通はないものと推測された。腹部血管造影では固有肝動脈, 右肝動脈は囊胞により左方に圧排されていたが, 栄養血管などは存在せず悪性腫瘍を示唆する所見も認められなかった(図5)。以上より総胆管囊胞としては胆道との交通が明らかでなく, 又, 肝囊胞としては位置的に肝内とは考えにくく, 診断を確定するため腹腔鏡を施行した。問題の囊胞病変は肝右葉下方胆嚢内側に位置し, 青色を呈する囊胞で総胆管囊胞は否定された。胆嚢は壁が白色混

濁し萎縮していた。又、肝左葉上方に腹部超音波検査、腹部CTにて指摘されていた直径5cmの肝嚢胞があり、他に肝右葉辺縁にも直径1mmから1cmの肝嚢胞が散在していた。胆嚢内側の問題の嚢胞に23ゲージのPTC針を直接刺入し、造影剤注入を行なったところ胆嚢壁に沿って見られたリンパ管が拡張し、嚢胞とリンパ管との交通が認められた。以上よりこの嚢胞は傍胆管リンパ管嚢胞と考えられた(図5)。この嚢胞に対し後日超音波ガイド下に無水エタノール注入を施行した。この時内容液を15ml吸引した。淡黄色、漿液性で比重は1.621、蛋白濃度2.2g/dl、Rivalta反応(-)、細胞診class Iであった。エタノール注入後1週間の腹部超音波検査にて嚢胞は直径4cmと縮小傾向を示し、触診上もほとんど触れなくなり自覚症状も消失し、7月7日軽快退院した。エタノール注入2ヵ月後の腹部超音波検査では嚢胞の消失を認め、その後も経過は順調である。

考 察

Polycystic diseaseの多発性嚢胞肝は、Melnickら¹⁾によると剖検例の検討では0.15%、中ら²⁾によると0.4%、その約50%に嚢胞腎を合併している¹³⁾。又、男女比は2:3で女性の方が多いようである⁴⁾。我々の例もpolycystic diseaseの一分症と考えられ、肝の他、腎にも嚢胞を認めた。傍胆管の嚢胞も肝外性に発育した肝嚢胞とも考えられるが、肝嚢胞は一般に嚢胞内面上皮の形態や発生する癌の組織型から考えて、胆管由来と考えられている⁵⁾。本症例の場合リンパ管との交通も明らかであり、やはり傍胆管リンパ管嚢胞と考えられる。このようなリンパ管嚢胞は、リンパ節郭清術後にはよくみられるが⁶⁾⁷⁾、まれに大腸^{9)~11)}、縦隔¹²⁾などにも認められる。胆管付近に認められた報告は総胆管壁内に認められた葛西ら¹³⁾の1例の他は報告を見ない^{14)~16)}。今回我々が経験した症例は明らかに胆管リンパ管と交通があり、他にこのような例の報告はなく極めてまれなものと思われた。この傍胆管リンパ管嚢胞に対し超音波下エタノール注入療法^{17)~19)}を行なったところ著効を示し、エタノール注入は自覚症状のある嚢胞疾患に対し積極

的に行なうべき治療法と考えられた。

結 語

Polycystic diseaseの一分症として発症したと考えられる傍胆管リンパ管嚢胞の1症例を経験し、その嚢胞に対し超音波下エタノール注入を施行し著効を得たので報告した。

文 献

- 1) Melnick PJ, et al: Polycystic liver, an analysis of seventy cases. Arch Pathol 59: 162, 1955.
- 2) 中 英夫, 他: 先天性肝嚢胞の病理. 肝胆膵 4: 833, 1982.
- 3) Shokeir MHK, et al: Expression of polycystic renal disease in the fetus and new born. Clin Genet 14: 61, 1978.
- 4) 円山英昭, 他: 日本病理剖検輯報による多嚢胞性疾患の統計的観察. 最新医学 41: 141, 1986.
- 5) 牛山孝樹, 和田達雄: 肝臓の嚢胞性疾患の病理. 外科 46: 344, 1984.
- 6) 赤松信雄, 他: リンパ節郭清術後に発生するlymphocystの超音波断層法による検討. 産婦人科治療 144: 119, 1982.
- 7) 原田 肇, 他: リンパ節郭清後に発生するリンパ貯留症の検討. 臨床婦産 7: 897, 1953.
- 8) 黒島振重郎, 他: 肝嚢胞を合併せる縦郭リンパ管腫の1手術例. 外科診療 8: 1041, 1984.
- 9) Girdwood TG, et al: Lymphatic cysts of colon. Gut 12: 933, 1971.
- 10) 秋本龍一, 他: 大腸リンパ管嚢一自験例および文献的考察一. 癌と臨 24: 1327, 1978.
- 11) 鈴木隆男, 他: 大腸におけるリンパ管嚢胞症について. 日生医誌 12: 35, 1984.
- 12) 黒島振重郎, 他: 肝嚢胞を合併せる縦隔リンパ管腫の1手術例. 外科診療 8: 87, 1984.
- 13) 葛西洋一, 他: Polycystic Diseaseに合併した総胆管壁内嚢胞の1例. 腹部画像診断 4: 30, 1984.
- 14) Bruhans R, et al: Benign neoplasma of the extrahepatic biliary ducts. Amer Surg March, 1971, p161.
- 15) 中瀬 明, 他: 本邦における良性胆道疾患の統計的観察, 145施設のアンケート集計の分析, 第1報. 確定診断病態の分析. 日消外会誌 15: 1358, 1982.
- 16) 中瀬 明, 他: 本邦における良性胆道疾患の統計的観察, 145施設のアンケート集計の分析, 第2報. 術中診断の評価. 日消外会誌 15: 1735, 1982.
- 17) Bean WJ: Renal cysts, treatment with alcohol. Radiology 138: 329, 1981.
- 18) 池岡直子, 他: 超音波映像下における肝嚢胞に対するエタノール注入療法. 日超医論文集 44: 647, 1984.
- 19) 池岡直子, 他: 肝嚢胞に対する超音波映像下エタノール注入療法. 日超医論文集 46: 71, 1985.