症 例

肝嚢胞腺腫術後経過中に発症した Biliary
Cystadenocarcinoma の 1 例

昭和大学病院外科（主任：石井淳一教授）

村 上 雅 彦 新 井 一 成 幡 谷 潔
 福 島 元 彦 石 井 博 竹 元 慎 吾
 河 村 一 敏 片 岡 徹 小 池 正

昭和大学病院第一病理

諸 星 利 男

昭和大学病院放射線科

宗 近 宏 次

肝嚢胞腺癌（Biliary Cystadenocarcinoma）は極めて稀な疾患であり，術前診断に難渋する疾患の 1 つである。症例は 79 歳の女性，右上腹部腫瘤を主訴に入院。精査にて単純性肝嚢胞と診断し，全身状態から開窓術のみに終った。病理組織診断は肝嚢胞腺腫で再発・癌化を考慮し，経過観察中の 1 年 8 カ月後に腹部腫瘤を再び認め，CT-scan・血管造影検査などから再発癌化，すなわち肝嚢胞腺癌と診断した。再開腹時に表面凹凸不整な肝左葉腫瘤と，一塊となった小・大網と腹膜・腸間膜への播種性転移が認められ，腫瘤核出術および小・大網切除術を施行するという興味深い経過をたどった。

文献的に集計し得た本邦報告例は自験例も含めて 27 例と極めて稀な疾患であり，かつ，術前診断に難渋することから，本邦例を集計し，詳細に亘る検討を加え報告する。

索引用語：肝嚢胞腺癌

はじめに

肝嚢胞腺癌（Biliary Cystadenocarcinoma）は極めて稀な疾患で，昭和 59 年までの文献的に集計し得た本邦報告例は自験例も含めて 27 例をみるにすぎない。自験例は初回入院時に肝嚢胞の診断で開窓術を行い，病理組織診断が肝嚢胞腺腫であったため経過観察中に，再発癌化した興味ある経過をたどった。症例を呈示し，本邦報告例を集計して検討を行い報告する。

症 例

患者：79 歳，女性。

主訴：右上腹部腫瘤。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：糖尿病にて食餌療法中。

初回入院時経過：昭和 56 年 11 月頃より右上腹部圧迫感出現。その後，胸やけ・悪心も加わり某医を受診し，上腹部腫瘤を指摘され，昭和 57 年 6 月 25 日当科に入院。入院時，栄養状態はやや不良であったが貧血・黄疸は認めなかった。心窩部に手拳大の弾性硬・表面平滑な

圧痛を有する腫瘤を触知した。血液一般・検尿・血液生化学検査にて異常は認めなかった。

腹部超音波検査では肝左葉に境界明瞭な直径約 10 cm の内部 echofree な cystic pattern を示す病変がみられた（図 1）。腹部 CT-scan 検査では肝左葉に肝門部までおよぶ境界明瞭な直径約 10 cm の巨大嚢胞性腫瘤がみられた（図 2）。腹腔動脈造影検査では左肝動脈の圧排偏位がみられ，静脈相で嚢胞に一致する avascular area がみられた（図 3）。

以上より単純性肝嚢胞を疑い，昭和 57 年 7 月 12 日手術施行。開腹時，肝左葉から肝門部におよぶ直径約 10 cm の巨大な嚢胞性腫瘤を認めたが，年齢・全身状態を考慮し，開窓術（deroofting）にとどめた。嚢胞内より約 800 ml のやや粘稠性のある無色透明な漿液性内容液を吸引し，残存嚢胞壁は電気メスにて焼却した。

病理組織学的検索（図 4）にて，内容液は Class II，被膜を dense fibrous connective tissue と single columnar epithelium が混在して形成し，上皮細胞は

図1 超音波像(右季肋部走査)約10cm ϕ の嚢胞を認める。

乳頭状腺様増殖を呈する肝嚢胞腺腫の診断であった。術後第46病日に軽快退院したが、再発および癌化を考慮し、外来にて経過観察していたところ、術後8ヵ月頃より右季上部に手拳大の腫瘤が出現。その後、上腹部全体に腫瘤が増大したため、昭和59年4月6日再入院となった。

再入院時経過：再入院時現症は栄養状態不良、5kgの体重減少があり、腹部には前回手術創(上腹部正中切開)直下より右上腹部にかけて、弾性硬の表面不整な圧痛を有する腫瘤を触知し、腹水も認めた。血液生化学検査では、CEA 3.0ng/dlの軽度上昇、CRP 6+および白血球増多症の炎症所見と低蛋白血症が認められた。

腹部超音波検査では肝左葉に直径約10cmの嚢胞性腫瘤を認め、嚢胞壁は前回入院時に比較して不均一に肥厚し、一部嚢胞腔に echogenic な不整形の突出が認められた(図5)。腹部 CT-scan 検査では肝左葉から下腹部にかけて low density の辺縁が irregular な mass lesion がみられ、不均一に enhance された(図6)。ERCP 検査では総胆管は軽度拡張し、右方へ圧排偏位され、左肝内胆管は2次分岐部より末梢側に不整拡張を認め、その中に大小不同の透亮像が散在していた。主膵管は拡張し、体部は下方へ圧排偏位される走行異常が認められた(図7)。腹部血管造影検査では左肝動脈は前回と同様に圧排偏位し、avascular area が認められ、胃大網動脈は上腹部正中に一塊となり、あたかも腫瘤の栄養血管様であった。

以上の所見から、嚢胞腺腫の再発癌化、すなわち嚢胞腺癌(Biliary Cystadenocarcinoma)と診断し、昭和59年4月26日手術を施行した。開腹時、肝左葉に表面凹凸不整な直径約10cmの腫瘤を認め、小・大網は一

図2 CT像

図3 腹部血管像（著明な動脈の圧排偏位を認める。）

図4 初回嚢胞壁組織像（はっきりとした悪性所見を認めない。）

図5 超音波像（再入院時）：創直下の腫瘍と内部エコーを伴う肝嚢胞

塊となり表面不整な硬い腫瘍を形成し、腹膜および小腸間膜に播種性転移と思われる粟粒から米粒大の小腫瘍を多数認めた。肉眼所見から根治手術は不可能であり、食餌摂取を少しでも可能にするため、腫瘍核出術および一塊となった小・大網の切除術を施行した。摘出標本の断面は嚢胞壁より内腔への充実性増殖が強く認められ、その間隙はゼラチン様粘液物質で満たされていた（図8）。

病理組織学的検索では内容液はClase II、実質は高分化型のtubulo-papillary adenocarcinoma tissueの増殖とcystadenoma pattern tissueとが混在し、高度の偽粘液物質産生所見が得られた（図9）。術前触知された腹部腫瘍は小・大網への転移によるものであった。

術後、軽度肝機能障害・微熱の遷延が認められたが術後第41病日に軽快退院した。

考 察

本症は1943年 Wills¹⁾が初めて報告して以来、1984年までの文献的に集計し得た本邦報告例は自験例を含めて27例（表1）、国外報告例を合わせても50例に満たず、極めて稀な疾患である。

その発生については、biliary cystadenomaの癌化^{26)~30)}と考えるのが一般的であり、組織学的には嚢胞壁が胆管組織由来で良性のbiliary cystadenomaと悪性のbiliary cystadenocarcinomaが混在する組織像を呈する症例が圧倒的に多い。本症例においては初回入院時は全身状態から開窓術にとどめたため、嚢胞壁の部分的な検索となったが、病理組織診断はcystadenomaであった。再入院時のretrospectiveな病理組織学的検索ではEdmondson³¹⁾の述べるcystadenomaの特徴的所見の中に一部cystadenocarcinomaと鑑別困難な移行型の細胞、すなわちWHO

図 6 CT 像 (囊胞内の CT 値に変化がみられる.)

図 7 ERCP 像 (左肝内胆管の著明な圧排・偏位)

図 8 切除標本 (上が小・大網が一塊となった腫瘍、下が肝囊胞腺癌。)

分類³²⁾の *borderline type* と同様の所見が存在していたことから、癌化が最も強く疑われ、初回手術時に嚢胞摘出術を行って、全嚢胞壁の詳細な検索を行えば、一部に癌化した組織が見いだせた可能性も否定できない。また、本症の発生病因としてその他に孤立性寄生虫性肝嚢胞³³⁾³⁴⁾、多発嚢胞性肝疾患¹⁾などからの良性肝嚢胞性疾患の悪性化を考える報告⁷⁾や、その発生病母地を肝内胆管枝に求める報告⁵⁾³⁵⁾³⁶⁾もあり、未だ明確な結論が得られていない。

好発年齢・性差についてみると、Berjian ら³⁷⁾の集計 (20例) では年齢は25～75歳 (平均50歳) にわたり、男女比も 1 : 1.2 とやや女性に多い傾向を示しているが、本邦報告例を集計すると、年齢は36～79歳 (平均57歳)、男女比は 1 : 3.3 (1例不明) と年齢分布はほぼ同様であったが、性差では女性に多い結果を得、中年以降の女性に好発するといわれる *biliary cystadenoma*³⁸⁾ と同様の傾向がみられる。

図 9 肝囊胞腺癌の組織像

臨床症状は本邦集計例では、腹部膨満感・腹部腫瘍は25例中12例 (48%) に、上腹部痛は20%にみられ、Berjian らの集計でも65%、35%と腹部膨満感・腹部腫

表1 肝囊胞腺癌本邦報告例

報告者(年度)	文献番号	年齢・性	症 状	発生部位・大	き	さ・割	面	手 術	予 後
1 小坂 進(1970)	2	46 ♀	左季肋部鈍痛	左 葉	・φ7.5cm	・solitary		左葉切除	1年9ヵ月死
2 中川 逸男(1974)	3	48 ♀	上腹部痛	左 葉	・750gr	・polycystic		左葉切除	
3 星野 輝彦(1974)	4	50 ♀	上腹部不快感・腫瘍	左 葉	・	・polycystic		囊腫部分切除	
4 菊地 節夫(1974)	5	51 ♂	黄疸	右 葉	・鶏卵大	・肝内胆管由来		胆摘・T-tube 挿入	31日死
5 増子 宜雄(1976)	6	64 ♀	軽度黄疸	左 葉	・	・polycystic		試験切除→部分切除	1年生
6 別府 真琴(1978)	7	44 ♀	右上腹部腫瘍	右 葉	・15×10×10cm	・polycystic		囊胞切除	1年5ヵ月生
7 村山 正毅(1979)	8	71 ♀		左 葉	・17×16, 8×8cm	・polycystic		囊腫切開排液ドレナージ	6年死
8 高島 茂樹(1980)	9	59 ♀	右上腹部腫瘍	右 葉	・12×15×9cm, 2550gr	・polycystic		囊腫摘出	2年生
9 高橋 正年(1980)	10	44 ♀	右季肋部腫瘍	両 葉	・13×13×8cm	・polycystic		囊胞摘出	23日生
10 長谷川 浩(1981)	11	56 ♂	上腹部痛・食欲不振	右 葉	・	・polycystic		右葉切除	1年5ヵ月生
11 大友 邦(1982)	12	62 ♀	食欲低下	右 葉	・15.5×14×6cm	・polycystic		拡大肝右葉切除	
12 竹内 和男(1983)	13	64 ♂	上腹部腫瘍	右 葉	・	・solitary			
13 片岡 和彦(1983)	14	53 ♀	腹部膨満・呼吸困難	両 葉	・	・polycystic		右葉切除	
14 川村 益生(1983)	15	45 ♂	肝機能異常	左 葉	・	・polycystic		左葉切除	
15 新村 康二(1983)	16	59	右上腹部腫瘍	右 葉	・15×12×9cm	・polycystic		囊胞摘出	6年生
16		53 ♀	腹部膨	左 葉	・16×14×12cm	・solitary		囊腫摘出	6ヵ月生
17 東 俊策(1983)	17	67 ♂	胆汁瘻	左 葉	・110gr	・		左葉外側区域切除	3年8ヵ月
18 神野 健次(1983)	18	36 ♀	腹部腫瘍	方形葉	・16×15×15cm	・polycystic			2年8ヵ月死
19 長谷川 洋(1983)	19	36 ♀	右季肋部痛	尾状葉	・55×40mm, 350gr	・polycystic		拡大肝左葉切除	1年生
20 岩崎 勇(1983)	20	65 ♀	食欲不振	両 葉	・	・粘稠		試験開腹	82日死
21 久木原上子(1983)	21	73 ♂		左 葉	・	・solitary		左葉切除	
22		60 ♀	上腹部圧迫感	左 葉	・	・polycystic			
23 村田 修一(1983)	22	53 ♀	呃気・嘔吐	左 葉	・8×8.5cm	・solitary		肝左葉外側区域切除	13ヵ月生
24 播磨 洋子(1984)	23	48 ♀	右季肋部痛・右上腹部腫瘍	右 葉	・20×17×13cm	・polycystic		囊腫摘出	1年5ヵ月生
25 富岡 勉(1984)	24	75 ♀	肝機能異常	肝内部	・φ2cm	・solitary		囊腫摘出	3ヵ月生
26 土肥 真(1984)	25	75 ♀	心窩部痛・黄疸	左 葉	・φ5cm	・solitary		左葉切除	
27 自 験 例(1984)	26	79 ♀	右上腹部腫瘍	左 葉	・φ10cm	・polycystic		囊腫摘出	7ヵ月生

瘤を契機に発見されることが多かった。

臨床検査所見では特有な所見はみられなかったが、腫瘍の大きさ、存在部位により腫瘍による胆管系の圧迫から黄疸を呈したり、胆道系酵素の上昇により発見されたとの報告⁵⁾⁶⁾¹⁶⁾²⁵⁾²⁶⁾が20%の症例にみられた。

腫瘍の発生部位は左葉13例、右葉9例、両葉3例と若干左葉に多いのに対し、Berjian らの報告では部位が確定できた12例中、左葉5例、右葉7例と逆に右葉に多い結果を示している。

腫瘍径は10cm以上の大きなものが大部分を占め、断面の形態は多房性17例、単房性8例であり、Berjian らの報告でも多房性14例、単房性5例と本症においては多房性を示す症例が多いようである。

内容液はムチン様粘液物質を認めるものが多く、記載のあった17例はすべて粘液性であったが、血性や漿液性の国外報告例もみられ、また6例⁵⁾⁶⁾¹²⁾²⁰⁾²²⁾²⁵⁾に胆管と囊胞との交通が認められている。

本症の他臓器転移は本邦では自験例以外報告されていないが、国外集計³⁷⁾では周囲臓器への浸潤、遠隔転移例(肺、脾など)が20例中9例(45%)と高率に認め

られるが、これは経過観察期間が本邦報告例より長く、また詳細な剖検症例が多いためと思われる、今後本邦報告例においても増加してくるものと思われる。

本症は術前に biliary cystadenoma と鑑別することは困難であり、術後または剖検後の病理組織学的検索にて初めて診断されるものが大部分である。肉眼的には cystadenoma, cystadenocarcinoma はともに単房性または多房性の囊胞性腫瘍で、一部に壁に性乳頭状充実性部分を有するという特徴がみられ、一般に卵巣や膵にみられる mucinous cystadenocarcinoma と同様な形態学的特徴を示し、開腹時の肉眼所見のみでは診断は困難なものと思われる。血管造影像、胆道造影像からは、一般的には囊胞による圧排所見がみられるだけで、悪性所見としての腫瘍の濃染像や胆管壁の悪性像が認められる例は少なく、特徴的な所見は認められなかった。しかし、近年における CT-scan・超音波検査などの画像診断の発達から、腫瘍径の比較的小さな、愁訴の少ない症例が発見されるようになり、さらに腫瘍の内部構造の描出が容易となり、他の囊胞性疾患と鑑別することも注意深い検索により可能となつて

きている。すなわち、超音波・CT 像は腫瘍断面で肉眼的にみられる厚い隔壁や囊胞壁と乳頭状結節をもつ cystic lesion を忠実に描出し、存在診断のみならず質的診断も可能となっており、予後良好な報告症例が増加するものと思われる。その他、単純性囊胞では乳頭状結節の存在はなく、先天性多発性肝囊胞は特徴的超音波像を示し、肝臓では隔壁は認められず、その他、悪性疾患・包虫症では血管造影その他の検査との組み合わせによる総合診断で鑑別可能となっており、

本症における治療は、囊胞ドレナージ・開窓術、囊胞摘出・肝切除と種々の術式が試みられているが、予後を考慮した安全性の高い術式は、手技として高度になるが、囊胞壁を損傷せず摘出可能な肝切除術が最適と思われる。これは、術前診断と同様に、開腹しても鑑別困難なこと、また cystadenoma の癌化の可能性を考慮すると、cystadenoma・cystadenocarcinoma にかかわらず、根治的治療を目的に積極的に肝葉切除を行うべきであり、同趣意の報告が近年多くみられるようになってきている。今回、われわれが経験した再発症例では、1) cystadenoma の癌化、2) 残存囊胞壁に一部癌組織が存在した可能性の 2 つの原因が考えられ、また、初回手術時の開窓術により内容液が漏出し腹膜播種を起こした可能性も十分に考えられる。文献的にも再発・死亡例を検討してみると、腹膜播種が多い傾向²⁸⁾³⁹⁾にあり、これらを考慮すれば、術前・術中の無造作かつ無意味な腫瘍内容液の吸引細胞診などは慎むべきであり、さらに、迅速診断により cystadenoma の診断がなされても、囊胞壁すべての詳細な検索がなされない限り悪性組織の存在を不定出来ないこと、無治療例やドレナージ例の 3 例⁵⁾⁸⁾²⁰⁾では全例早期に死亡していることなどを考慮すれば、良性あるいは悪性ともに絶対的な肝葉切除の適応があると痛感させられた。治療に関して極言すれば、cystadenocarcinoma の診断を術中に確定するための迅速細胞診を行うより、肝外科の術前・術後管理ならびに手技の発達してきた現在では、術式の選択から治療効果を高めるべく、第一選択は肝切除、少なくとも囊胞核出術がなされるべきと思われた。

予後は、本邦報告例でみると報告死亡例は 27 例中 5 例 (19%) で、最長 6 年、最短 31 日であり、Berjian らによれば報告 18 例中 12 例 (67%) が 2 年以内に死亡しており、3 年以上生存例は 3 例 (17%) と少なく、原発性肝癌・胆管癌に比較すると若干良好といえるが、

一般的には予後不良と考えられる。しかし、画像診断の発達、積極的かつ適切な外科治療により、今後治療成績の向上が期待しうる疾患と思われ、本邦集計例を検討し報告した。

結 語

興味ある経過をとった biliary cystadenocarcinoma の 1 例を報告し、本邦報告例を集計して検討を行ない、肝囊胞性疾患の外科的治療は肝葉切除が第一選択されるべきことを強調した。

尚、本論文の要旨は第 180 回日本消化器病学会関東甲信越地方会で発表した。

文 献

- 1) Wills, R.A.: Carcinoma arising in congenital cysts of the liver. J. Pathol. & Bact, 55: 492—495, 1943.
- 2) 小坂 進, 水上哲次, 橋本之方他: 囊腫形成型肝癌について, 日外会誌, 71: 1292—1294, 1970.
- 3) 中川逸男, 平岡武久, 江崎泰明他: 孤立性多房性肝囊腫について, 日消外会誌, 7: 77—78, 1974.
- 4) 星野輝彦, 後藤裕己, 加藤 泰他: 悪性化した真性肝囊腫の 1 例, 外科, 37: 1094—1098, 1974.
- 5) 菊地節夫, 八子 亮, 渡辺典治他: 閉塞性黄疸を呈した肝内胆管由来のムチン産生性囊胞腺癌の 1 例, 外科, 37: 1193—1198, 1974.
- 6) 増子宜雄, 佐藤富良, 栗根康行他: 肝囊胞腺癌 (cystadenocarcinoma) の 1 例, 日外会誌, 77: 1729, 1976.
- 7) 別府眞琴, 佐近賢人, 藤本憲一他: 肝囊胞の癌化について—その 1 例と文献的考察—, 日消誌, 75: 738—745, 1978.
- 8) 村山正毅, 三村 久, 佐々木明他: 肝囊胞性疾患 (cystadenocarcinoma 1 例, Cyst 2 例) の手術経験, 日外会誌, 80: 677, 1979.
- 9) 高島茂樹, 田中良則, 山口明夫他: 肝右葉に発生した巨大な cystadenocarcinoma の 1 例, 癌の臨, 26: 192—198, 1980.
- 10) 高橋左年, 天目純生, 笠原小五郎他: 肝囊胞腺癌の 1 例, 臨外, 35: 1329—1334, 1980.
- 11) 長谷川浩, 大田重久, 重沢松恭裕他: Ehco 下穿刺にて診断し得た Cholangiocystadenoma の 1 治療例, 腹部画像診断, 2: 116—121, 1981.
- 12) 大友 邦, 古井 滋, 吉川宏起他: Biliary cystadenocarcinoma の 1 例, 臨放, 27: 1469—1472, 1982.
- 13) 竹内和男, 中島正男, 吉場 郎他: 肝細胞腺腫・肝のう胞腺癌・限局性結節性肥大の各 1 症例, 肝臓,

- (第19回総会講演要旨), 111, 1983.
- 14) 片岡和彦, 竹内一八, 小林征二他: 肝のう胞壁が癌化したと思われる多発性腎のう癌患者における肝臓の1例, 肝臓(第19回総会講演要旨), 122, 1983.
 - 15) 川村益生, 蜂矢 仁, 吉岡宣夫他: 肝のう胞腺癌の1治験例, 肝臓(第19回総会講演要旨), 123, 1983.
 - 16) 新村康二, 木南義男, 加藤真司他: 肝のう胞腺癌の2例, 肝臓(第19回総会講演要旨), 123, 1983.
 - 17) 東 俊策, 今井俊積, 野口 孝他: 肝のう胞腺腫並びにのう胞腺癌の各1例, 肝臓(第19回総会講演要旨), 124, 1983.
 - 18) 神野健次, 森脇昭介: 肝原発のう胞腺癌の1剖検例, 肝臓(第19回総会講演要旨), 124, 1983.
 - 19) 長谷川洋, 二村雄次, 早川直和他: 経皮経肝胆道鏡(PTCS)により術前診断できた biliary cystadenocarcinoma の1例, 日消外会誌, 16: 1380—1383, 1983.
 - 20) 岩崎 勇, 岩瀬裕郷, 高橋 淳他: 肝のう胞腺癌の1剖検例, 肝臓, 24: 100—103, 1983.
 - 21) 久木原上子, 山口和志, 小山隆夫他: Biliary cystadenocarcinoma の2例, 臨放, 28: 1587—1590, 1983.
 - 22) 村田修一, 石川義磨, 森 善裕他: 肝左葉原発の biliary cystadenocarcinoma の1例, 肝・胆・膵, 7: 453—458, 1983.
 - 23) 播磨洋子, 白石友邦, 螺良愛郎他: 腹腔内に穿孔した Biliary cystadenocarcinoma の1例, 癌の臨, 30: 93—98, 1984.
 - 24) 富岡 勉, 浦 一秀, 山本賢輔他: 左肝管内発育を示した Biliary Cystadenocarcinoma の1例, 日臨外会誌, 45: 126—131, 1984.
 - 25) 土肥 真, 星野恵津夫, 林 茂樹他: 心窩部痛と黄疸で発症した肝嚢胞腺癌の1例, 第80回日本消化器学会関東甲信越地方会予報集, 26, 1984.
 - 26) Woods, G.L.: Biliary cystadenocarcinoma. Case report of hepatic malignancy originating in benign cystadenoma. *Cancer*, 47: 2936—2940, 1981.
 - 27) Marsh, J.L., Dahms, B. and Longmire, W.P. Jr.: Cystadenoma and cystadenocarcinoma of the biliary system. *Arch. Surg.*, 109: 41—43, 1974.
 - 28) Thompson, J.E. and Wolff, M.: Intrahepatic cystadenoma of bile duct origin. with malignant alteration. Report of a case, treated with total left hepatic lobectomy. *Milt. Med.*, 130: 218) 224, 1965.
 - 29) Ishak, K.G., Willis, G.W., Cummins, S.D., et al.: Biliary cystadenoma and cystadenocarcinoma. *Cancer*, 39: 322—338, 1977.
 - 30) Kohne, K.: An autopsy case of cystadenocarcinoma arising from cystadenoma of the liver. 日本癌学会第36回総会記事, 268, 1977.
 - 31) Edmondson, H.A.: Tumors of the liver and intrahepatic bile ducts. (Atlas of tumor pathology. Sect. VII, Fasc. 25). Washington, D.C., Armed Forces Institute of Pathology, 109, 1958.
 - 32) Sobin, L.H.: Histological typing of ovarian tumors. World Health organization, 00: 38—39, 1973.
 - 33) Ameriks, J., Appleman, H. and Frey, C.: Malignant nonparasitic cyst of the liver. *Ann. Surg.*, 176: 713—717, 1972.
 - 34) Moschowitz, E.: Non-parasitic cysts (congenital) of the liver, with a study of aberrant bile ducts. *Ann. J. Med. Sci.*, 131: 674—699, 1906.
 - 35) Dean, D.L. and Bauer, H.M.: primary cystic carcinoma of the liver. *Ann. J. Surg.*, 117: 416—420, 1969.
 - 36) Yamasaki, I., Tagata, K., Hamamoto, Y., et al.: An autopsy case of mucinous cystadenocarcinoma of the liver. *Yonago Acta Medica*, 20: 142—146, 1976.
 - 37) Berjian, R.A., Mime, F., Douglass, H.O. Jr., et al.: Biliary cystadenocarcinoma. Report of a case presenting with osseous metastasis and a review of the literature. *J. Surg. Oncol.*, 18: 305—316, 1981.
 - 38) Roedel, B.A., William J. Marx, William, B., et al.: Cystadenoma of the liver. *J. Clin. Gastroenterol.*, 4: 167—172, 1982.
 - 39) Fudge, T.L., Decamp, P.T. and Ochner, J.L.: Cystadenocarcinoma of the liver. A case report. *J. Louisiana St. Med. Soc.*, 130: 1—2, 1978.

A CASE REPORT RESULTED IN BILIARY CYSTADENOCARCINOMA AFTER
THE OPERATION FOR BILIARY CYSTADENOMA

Masahiko MURAKAMI, Kazushige ARAI, Kiyoshi HATAYA, Motohiko FUKUSHIMA,
Hiroshi ISHII, Shingo TAKEMOTO, Kazutoshi KAWAMURA, Toru KATAOKA,
Tadashi KOIKE, Toshio MOROBOSHI* and Hirotugu MUNECHIKA**

Department of Surgery, Showa University School of Medicine
(Director: Prof. Junichi ISHII)

*The First Department of Pathology, Showa University School of Medicine

**Department of Radiology, Showa University School of Medicine

Biliary cystadenocarcinoma is a very rare disease and difficult to diagnose before surgery. The patient, a 79-year-old woman, was admitted to our hospital with the chief complaint of a tumor in the right upper abdomen. The patient was diagnosed a simple hepatic cyst and the deroofing was performed, judging from general conditions. Considering recurrence and malignant change, subsequent observation was carried out, and an abdominal tumor was found one year and eight months after the operation. Biliary cystadenocarcinoma was diagnosed from CT scan, angiography, etc. When laparotomy was performed again, an uneven and irregular tumor in the left hepatic lobe, the greater and lesser omenta changing to a mass, and disseminated metastases to the peritoneum and mesentery were found. The tumor enucleation and the excision of the greater and lesser omenta were performed.

As the number of case reports of this disease in Japan is very rare, i.e., 27 cases including ours, and the preoperative diagnosis is difficult, it is thought to be significant to compile these case reports and report these details.