

症例報告

巨大肝嚢胞により肺血栓塞栓症を来した症例に対して 血栓溶解療法後に腹腔鏡下肝嚢胞開窓術を施行した一例

奥田尚子¹⁾, 菅野伸洋¹⁾, 久保田陽²⁾, 福井綺夏¹⁾,
待鳥悠¹⁾, 佐藤泉¹⁾, 秋元規宏¹⁾, 岡本浩直¹⁾,
合田杏子¹⁾, 中山博貴¹⁾, 山伸一輝¹⁾, 羽鳥慎祐¹⁾,
谷和行¹⁾

¹⁾平塚共済病院 外科

²⁾平塚共済病院 消化器内科

要旨: 症例は72歳男性, 右腹部膨隆を主訴に来院し腹部CTで肝右葉に20×14cmの肝嚢胞を認めた。無症候性であり経過観察の方針となった。2週間後に頻呼吸, 呼吸困難を主訴に再度来院した。胸腹部造影CT検査で肝嚢胞により高度に圧排された下大静脈と, 両側腸骨静脈内および両側肺動脈主幹部に低吸収域を認め, 深部静脈血栓症ならびに肺血栓塞栓症の診断となった。抗凝固療法を施行し血栓が消退傾向となったのちに待機的に腹腔鏡下に肝嚢胞開窓術を施行した。術後経過は良好で肝嚢胞の再燃なく経過している。単純性肝嚢胞は無症候の場合は治療対象とならないが臨床症状を有する場合には治療適応となる。本症例では来院時には無症候性であったがCTで肝嚢胞とそれに伴う下大静脈圧排像を認めており, その後短期間で深部静脈血栓症ならびに肺血栓塞栓症を呈した。無症候性でも下大静脈の圧排所見を認めた場合には手術を含めた治療介入を検討する必要がある。腹腔鏡下肝嚢胞開窓術は低侵襲でありよい治療適応となる。今回我々は巨大肝嚢胞に伴う肺血栓塞栓症を発症し腹腔鏡下肝嚢胞開窓術により治療した症例を経験したので報告する。

Key words: 巨大肝嚢胞 (giant liver cyst), 腹腔鏡下開窓術 (Laparoscopic liver cyst fenestration), 肺血栓塞栓症 (pulmonary thromboembolism)

はじめに

単純性肝嚢胞の罹患率は5~18%とされ, 無症状の場合は治療対象とならない。腹痛や嘔吐, 黄疸や出血の臨床症状を有する場合には治療適応となる。今回我々は巨大肝嚢胞による下大静脈圧排に伴い深部静脈血栓症を発症し, 肺血栓塞栓症に至った一例を経験した。肺血栓塞栓症, 深部静脈血栓症に対して抗凝固療法を施行後に腹腔鏡下肝嚢胞開窓術を施行することで血栓塞栓症の再燃なく経過した。

症 例

患者: 72歳, 男性。

主訴: 腹部膨隆。

既往歴: 腹部大動脈瘤 (無治療経過観察中), 不安定狭心症 (58歳, ステンント留置後), 高血圧症, 十二指腸潰瘍 (56歳)

生活歴: 喫煙歴なし, 機械飲酒

アレルギー: 薬剤なし, 食物なし

内服薬: ニコランジル, アムロジピン, アスピリン, ファモチジン

現病歴: 右腹部膨隆を自覚し近医を受診。肝腫瘤が疑わ

奥田尚子, 東京都品川区東大井6丁目3-22 (〒140-8522) 東京品川病院 外科
(原稿受付 2023年8月14日/改訂原稿受付 2023年10月2日/受理 2023年10月5日)

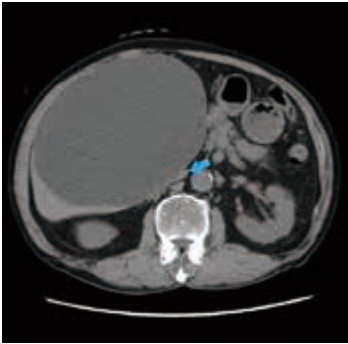


図1

初診時単純CT, 肝嚢胞と下大静脈の圧排所見 (矢印) あり.

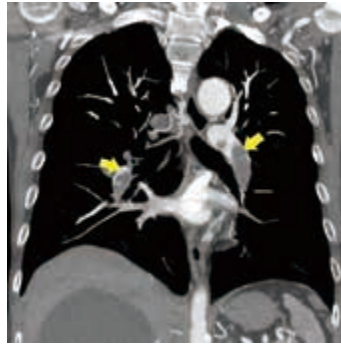


図2

肺血栓塞栓症発症時造影CT, 両側肺動脈主幹部に低吸収域 (矢印) を認めた.

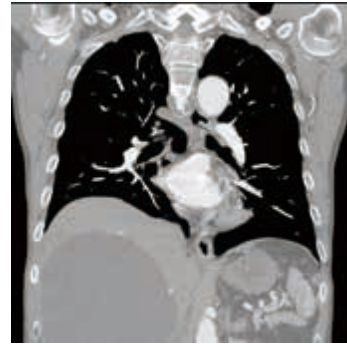


図4

退院後造影CT, 両側肺動脈主幹部の低吸収域は消失を認めた.



図3a

嚢胞に小孔をあけ内容液を穿刺吸引した.



図3b

開窓後、止血、胆汁漏ないことを確認した.

れ当院消化器内科紹介となった.

初診時現象: 身長169.0cm, 体重64.1kg. 腹部所見; 右上腹部膨隆あり, 軟, 圧痛点なし.

初診時検査所見:

胸部~骨盤部単純CT; 肝右葉S5を首座とする20cm×14cmの境界明瞭, 内部均一な低吸収域を認め肝嚢胞と診断した. 下大静脈は肝嚢胞により圧排され虚脱を認めた.

造影MRI; T1強調像で低信号, T2強調像で高信号, 増強効果なく拡散制限認めず. 肝嚢胞の診断となった.

無症候性であるため経過観察となった.

来院後経過 (初診13日後): 洞性頻脈, 息切れを主訴に来院あり.

来院時現症: SpO₂ 94% (大気下), PR 110bpm, RR 20回/分, BP 167/122mmHg, BT37.0度

両側下肢圧痕性浮腫あり, 下腿把握痛なし

肺塞栓発症時検査所見:

心電図; HR118bpm, 洞調律, ST-T変化なし.

胸部レントゲン; 心胸郭比保たれうっ血所見なし, 胸水貯留なし.

採血; Dダイマー23.7, 動脈血液ガス分析; PaO₂ 61.0 PaCO₂ 35.2.

心臓超音波検査; EF47.6%, MR II°, TRPG max/mean 38.5/25.7mmHg, IVCは肝嚢胞による圧排のため狭小化あり.

造影CT; 両側大腿~下腿静脈内, 両側腸骨静脈内に低吸収域あり, 両側肺動脈主幹部に低吸収域あり. 巨大肝嚢胞に伴い下大静脈圧排像あり.

肺塞栓症発症後経過: 第1病日, 肺血栓塞栓症ならびに深部静脈血栓症の診断となり救急外来でヘパリン5000単位静脈注射を施行, 入院後ヘパリン10000単位/日持続投与開始となった. 第2病日よりエンドキサバン60mg/日内服開始となった. 第4病日にDダイマー7.50と改善を認めたため第5病日にヘパリン投与終了とした. 第7病日に左右肺動脈主幹部の血栓は改善傾向を認め, 両側腸骨静脈の血栓も減少傾向, 大腿静脈内の血栓は残存していた. 第8病日, エンドキサバン60mg/日内服継続のまま自宅退院となった.

その後も抗凝固療法を継続し外来通院で経過観察を行った. 第30病日時点の造影CTで両側肺動脈中枢の血栓は完全に消失あり, 肺動脈末梢に一部血栓が残存するのみであった. また両大腿から下腿静脈の血栓は消失を認め, 両側外腸骨静脈の血栓は縮小し壁在にごくわずかな血栓のみとなった.

巨大肝嚢胞に伴う下大静脈圧排により深部静脈血栓

表1 本邦での肝嚢胞に伴う下大静脈 (IVC) 血栓症ならびに肺血栓塞栓症についての症例報告一覧

症例	年齢(歳)	性別	サイズ(cm)	肝嚢胞性状	肺塞栓	IVC血栓	手術加療	IVCフィルター
① ¹¹⁾	96	女	20	多発	あり	あり	なし	-
② ¹²⁾	60	男	16×14	単発	あり	あり	血栓回収	-
③ ¹³⁾	68	男	30	多葉性	なし	あり	なし	-
④ ¹⁴⁾	80代	女	不明	多発	なし	なし (右総腸骨静脈血栓)	腹腔鏡下 開窓術	- (血栓消失後手術)
⑤ ¹⁵⁾	83	女	不明	単発	なし	あり	腹腔鏡下 開窓術	術後5日目
⑥ ¹⁶⁾	62	女	30×20	単発	なし	あり	腹腔鏡下 開窓術	術前3日前
⑦ ¹⁷⁾	80	女	不明	単発	なし	あり	なし	-
本症例	72	男	20×14	単発	あり	なし	腹腔鏡下 開窓術	-

症が生じたため肺血栓塞栓症を発症したと考えられた。このため手術加療目的に第32病日外科併診初診となった。巨大肝嚢胞に対して腹腔鏡下開窓術施行予定とした。

術前の抗凝固療法により深部静脈血栓症についてはほぼ消失しており肺血栓塞栓症も改善が認められていることから、新たに致死的な肺血栓塞栓症を来すリスクが低いことを確認し下大静脈フィルターは挿入せず手術を行った。

第42病日、手術目的に入院。同日朝よりエンドキサバン術前休薬とした。第43病日に腹腔鏡下肝嚢胞開窓術を施行した。

手術所見：手術は全身麻酔、伝達麻酔下に碎石位で施行した。臍にカメラポートを挿入し右側腹部に5mmポート、左側腹部に5mmポート、左肋弓窩に12mmポートを留置した。

10mm硬性鏡を使用した。腹腔内癒着なし。肝S5を首座とする巨大肝嚢胞を認めた。超音波凝固切開装置で小孔をあけ、内容液を吸引した。内容液は細胞診、生化学、培養検査に提出した。内容液は計3550mlであった。操作性向上のため右上腹部に5mmポートを追加した。超音波凝固切開装置で嚢胞壁の天蓋切除を行った。嚢胞壁切離断端の一部に出血を認めたため焼灼止血した。胆汁漏は認めなかった。腹腔内を洗浄後し開窓後の肝嚢胞壁に大網を充填した。肝右葉外側にドレーンを留置し手術終了とした。手術時間2時間28分、出血少量。

切除標本所見：単純性肝嚢胞

術後経過：術後経過は良好で術翌日より離床、食事開始。術後2日目よりエンドキサバン内服再開とした。術後5日目にドレーン抜去し術後7日目に自宅退院となった。術後早期より両側下肢浮腫は著明に改善を認めた。

術後2か月時点にて採血でDダイマー0.5と正常化し、造影CT検査で肝右葉表面にわずかに被胞化腔を伴うものの再燃はなく、圧排されていた肝右葉は軽度肥大化を認めた。下大静脈の圧排所見は消失した。肺動脈の右上葉枝に血栓の残存を認めたが、深部静脈血栓はほぼ消失しておりエンドキサバン内服継続となっている。

考 察

肝嚢胞は主に先天性、後天性の要因に分類され、先天性の成因は胎生期の遺残した異常肝内胆管が拡張したものと考えられている。後天性のものは外傷性、炎症性、寄生虫性、腫瘍性のものがある¹⁾。単純性(先天性)肝嚢胞の罹患率は5~18%とされ、女性に多い^{2,3)}。無症状のものは治療不要である。一方、嚢胞の巨大化により周囲の臓器を圧排することで腹痛や嘔気、嘔吐、黄疸などの臨床症状を呈するものは治療対象となる⁴⁾。また下大静脈が圧排されることで深部静脈血栓症を引き起こすこともある⁵⁾。治療法は内科的治療として経皮経肝嚢胞ドレナージ術やミノサイクリン・無水エタノール注入硬化療法がある^{6,7)}。これらは簡便であり低侵襲性であるが再発率が高く、穿刺に伴う逆行性感染や反復注入治療による入院期間の長期化の可能性がある^{8,9)}。外科的治療としては開窓術(天蓋切除術)、肝切除術、嚢胞切除術、肝移植術などがある。なかでも開窓術は外科的治療の中で最も侵襲が少ない。肝の限局した領域に大きな嚢胞が存在する症例に適しており特に嚢胞が肝表に存在する場合に有用とされる¹⁰⁾。

本邦において肝嚢胞に伴発した下大静脈血栓症の報告は散見されるが肺血栓塞栓症を併発した症例の報告はほとんどない。医学中央雑誌において「肝嚢胞」「肺塞栓

症」(会議録除く)のキーワードで全期間にわたり検索したが論文報告例は2例のみであった。うち1例は肺血栓塞栓症により死亡の転帰となっており¹¹⁾、うち1例は肝嚢胞に併発した肺血栓塞栓症に対して抗凝固療法及び血栓回収を行い救命し得たがその後の肝嚢胞に対しての治療については言及されていない¹²⁾。

本症例は巨大肝嚢胞による下大静脈圧排に伴い深部静脈血栓症を発症し、肺血栓塞栓症に至った一例である。肺血栓塞栓症ならびに深部静脈血栓症は抗凝固薬による治療開始に伴い縮小傾向を認めた。巨大肝嚢胞に伴う下大静脈圧排により血流うっ滞を生じていたため、根本的治療として外科的治療が選択された。肝嚢胞は肝表面S5に局限しており開窓術のよい適応と考えられた。

術前に深部静脈血栓症に対して下大静脈フィルター留置の必要性について検討した。下大静脈フィルター留置については「肺血栓塞栓症及び深部静脈血栓症の診断、治療、予防に関するガイドライン(2017年改訂版)」において、下大静脈フィルター留置は急性の肺血栓症の一次ないし二次予防を目的とするものとされており、挿入による短期合併症としては穿刺に関する血腫、穿刺部血栓、空気塞栓、動静脈瘻形成など、フィルターの下大静脈以外の分枝静脈への誤留置、心臓内や肺動脈への移動、不完全展開などとされている。本症例では出血リスクはなく術前の抗凝固療法により深部静脈血栓症、肺血栓症ともに消退傾向であった。術後も抗凝固療法の速やかな再開が可能であることが見込まれ、残存血栓は外腸骨静脈にわずかに残るのみであり肺血栓症を発症し致死的となる可能性は低いと考えられた。このため循環器内科、麻酔科と協議し施行しない方針とした。手術時腹腔内気圧を8 mmHgから開始し嚢胞液の吸引は麻酔科医へ開始、吸引量を報告して連携をとりながら少量ずつ行い、バイタルの変化がないことに留意した。本症例では目立ったバイタル変化は認めず安全に手術施行が可能であった。

本邦での肝嚢胞に伴う下大静脈内血栓症ならびに肺血栓塞栓症についての症例報告について医学中央雑誌で「肝嚢胞」「血栓症」(会議録除く)として筆者が検索し得たものについて一覧に記載する。なお、全例で抗凝固療法が施行されていた。嚢胞の圧排による下大静脈血栓症の報告は複数例あるが肺血栓塞栓症を来しかつ腹腔鏡下肝嚢胞開窓術を施行した症例報告は本邦初である。本症例は初診時には無症状で右腹部膨隆のみであったものの当院初診13日後に肺血栓塞栓症を発症しており、下大静脈圧排にともなう深部静脈血栓症および肺血栓塞栓症発症の可能性を考慮し早期に治療適応を判断する必要が示唆された。

文 献

- 1) Cowles RA, Mulholland MW: Solitary hepatic cysts. *J Am Coll Surg*, **191** (3): 311–321, 2000.
- 2) Kaitlyn Kelly, Sharon M. Weber: Cystic Diseases of the Liver and Bile Ducts. *Gastrointest Surg*, **18**: 627–634, 2014.
- 3) Carrim ZI, JT Murchison: The prevalence of simple renal and hepatic cysts detected by spiral computed tomography. *Clin Radiol*, **58** (8): 626–629, 2003.
- 4) Sanfelippo PM, Beahrs OH, Weiland LH: Cystic disease of the liver. *Ann Surg*, **179** (6): 922–925, 1974.
- 5) Kimura N, Tsuchiya A, Ogawa M, et al.: A Case of inferior vena cava thrombosis caused by compression due to growing giant liver cyst. *Clinical Journal of Gastroenterology*, **12** (1): 71–75, 2019.
- 6) 藤井秀則, 山本広幸, 田中猛夫, 谷川允彦, 村岡隆介: 肝嚢胞症に対する無水エタノール注入療法の経験. *日本臨床外科学会雑誌*, **53** (7): 1681–1686, 1992.
- 7) 鹿股宏之, 小林健二, 星川竜彦, 加瀬建一, 篠崎浩治, 尾形佳郎: 閉塞性黄疸を来し塩酸ミノサイクリン注入療法が有効であった巨大肝嚢胞の1例. *日本臨床外科学会雑誌*, **70** (10): 3080–3085, 2019.
- 8) Andersson R, B. Jeppsson, A. Lunderquist, S Bengmark: Alcohol sclerotherapy of non-parasitic cysts of the liver. *Br J Surg*, **76** (3): 254–255, 1989.
- 9) M I Kairaluoma, A Leinonen, M Stahlberg, M Päiväsalo, H Kiviniemi, T Siniluoto: Percutaneous aspiration and alcohol sclerotherapy for symptomatic hepatic cysts. An alternative to surgical intervention. *Ann Surg*, **210** (2): 208–215, 1989.
- 10) Gigot JF, Jadoul P, Que F, et al.: Adult polycystic liver disease: is fenestration the most adequate operation for long-term management? *Ann Surg*, **225** (3): 286–294, 1997.
- 11) 鈴木慎太郎, 奥田健太郎, 九島巳樹, 矢持淑子, 太田秀一: 巨大孤立性肝嚢胞に併発した下大静脈血栓症・急性肺塞栓症の1例. *臨床雑誌内科*, **97** (4): 748–750, 2006.
- 12) 影山理恵, 緑川博文, 植野恭平, 武富龍一, 菅野恵: 巨大肝嚢胞に併発し救命し得た肺塞栓症の1例. *心臓*, **53** (1): 95–100, 2021.
- 13) Kimura N, Tuchiya A, Ogawa M, et al.: A case of inferior vena cava thrombosis caused by compression due to growing giant liver cyst. *Clin J Gastroenterol*, **12** (1): 71–75, 2019.
- 14) 仲本 寛, 西原 実, 尾下陽大, 他: 両下肢浮腫で

- 見つかった巨大肝嚢胞に対して腹腔鏡下肝嚢胞開窓術を行い、著効した1例. 沖縄医学会雑誌, **55** (4) : 42-44, 2017.
- 15) Kashiwagi H, Kumagai K, Nozue M : Single incision laparoscopic surgery for a life-threatening, cyst of liver. Tokai j Exp Clin Med, **36** (1) : 13-6, 2011.
- 16) 小倉佑太, 大島隆一, 國場幸均, 他 : IVC血栓合併を疑いフィルター留置後 腹腔鏡下開窓術を行った30cm肝嚢胞の1例. 日臨外会誌, **79** (10) : 2150-2155, 2018.
- 17) Taguchi E, Nakanishi N, Nakao K, Sakamoto T : 孤発性肝嚢胞の拡大により生じた下大静脈血栓. Circulation J, **82** (2) : 604-605, 2018.

Abstract

A CASE OF PULMONARY THROMBOEMBOLISM CAUSED BY A GIANT HEPATIC CYST THAT WAS TREATED WITH THROMBOLYTIC THERAPY FOLLOWED BY LAPAROSCOPIC HEPATIC CYSTOTOMY

Naoko OKUDA¹⁾, Nobuhiro SUGANO¹⁾, Yo KUBOTA²⁾, Ayaka FUKUI¹⁾, Haruka MACHIDORI¹⁾, Izumi SATO¹⁾, Norihiro AKIMOTO¹⁾, Hironao OKAMOTO¹⁾, Kyoko GODA¹⁾, Hirotaka NAKAYAMA¹⁾, Kazuki YAMANAKA¹⁾, Shinsuke HATORI¹⁾, Kazuyuki TANI¹⁾

¹⁾Department of Surgery, Hiratsuka Kyosai Hospital

²⁾Department of Gastroenterology, Hiratsuka Kyosai Hospital

Treatment is not usually indicated for asymptomatic hepatic cysts; treatment is considered when symptoms are present. Although there have been scattered reports of inferior vena cava thrombosis associated with giant hepatic cysts, pulmonary thromboembolism associated with simple hepatic cysts is rare. A 72-year-old man presented to our hospital with a chief complaint of right abdominal distention. Two weeks later, he returned to our hospital with a complaint of dyspnea. Oxygenation worsened, edema was observed in the lower extremities, and blood sampling showed a high D-dimer level. Contrast-enhanced computed tomography (CECT) of the thorax and abdomen showed hypo-absorptive areas in the inferior vena cava, bilateral common iliac veins, and bilateral main pulmonary arteries, which were highly constricted by hepatic cysts, and a diagnosis of deep vein thrombosis and pulmonary thromboembolism was made. After anticoagulant therapy and resolution of the thrombus, a laparoscopic hepatic cystotomy was performed as a standby procedure. Postoperatively, the patient's leg edema improved, and CECT showed improvement in the pulmonary thromboembolism. A case of pulmonary thromboembolism associated with a giant hepatic cyst is reported.