

症例報告

FDG-PET/CT で異常集積を認めた 黄色肉芽腫性胆嚢炎の 1 例

熊田早紀子*, 伊藤 忠雄, 湯徳 祐樹, 須藤 萌
吉岡 綾奈, 岡島 航, 竹下 宏樹
石井 博道, 山口 正秀, 中西 正芳

松下記念病院外科

A Case of Xanthogranulomatous Cholecystitis with Abnormal Accumulation on Fluorodeoxyglucose-positron Emission Tomography/Computed Tomography

Sakiko Kumata, Tadao Ito, Yuki Yutoku, Moe Sudo
Ayana Yoshioka, Wataru Okajima, Hiroki Takeshita
Hiromichi Ishii, Masahide Yamaguchi and Masayoshi Nakanishi

Department of Surgery, Matsushita Memorial Hospital

抄 録

黄色肉芽腫性胆嚢炎 (Xanthogranulomatous cholecystitis: XGC) は 1948 年に Weismann らにより最初に報告された胆嚢炎の 1 亜型で, 胆嚢壁内に xanthoma cell と呼ばれる組織球を主体とした肉芽腫を形成する比較的まれな疾患である¹⁾. FDG-PET/CT で異常集積を認めることが多いとされ, 胆嚢癌との鑑別に苦慮する症例も散見される. 今回, われわれは FDG-PET/CT で異常集積を認め術前診断で胆嚢癌が否定できなかった XGC 症例を経験したので報告する.

キーワード: 黄色肉芽腫性胆嚢炎, 胆嚢癌, FDG-PET/CT.

Abstract

Xanthogranulomatous cholecystitis (XGC) is a subtype of cholecystitis first reported by Weismann et al. in 1948. It is a relatively rare disease in which granulomas consisting mainly of histiocytes called xanthoma cells form within the gallbladder wall¹⁾. In such cases, abnormal uptake is often seen on fluorodeoxyglucose-positron emission tomography/computed tomography (FDG-PET/CT), and some cases are difficult to differentiate from gallbladder cancer. We report a case of XGC in which abnormal uptake was observed on FDG-PET/CT and gallbladder cancer could not be ruled out by preoperative diagnosis.

Key Words: Xanthogranulomatous cholecystitis, Gallbladder cancer, FDG-PET/CT.

令和 5 年 7 月 3 日受付 令和 5 年 12 月 28 日受理

*連絡先 熊田早紀子 〒602-8566 京都市上京区河原町通広小路ル梶井町465番地

s.kumata.kpum@gmail.com

doi:10.32206/jkpum.133.03.159

症 例

症例：71歳，女性。

主訴：右季肋部痛。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：右季肋部痛を主訴に2022年5月に前医を受診。急性胆嚢炎が疑われたがCA19-9が異常高値であり腹部超音波・腹部造影CT・MRIの所見から胆嚢癌の結腸および腹壁への浸潤が疑われたため手術目的に同年6月に当科紹介となった。

現症：身長148cm，体重54kg，BMI 24.6。受診時に腹痛は認めず。

血液検査：前医での初診時はWBC 12260/ μ L (Neut 67.6%)，CRP 3.87mg/dL，CA19-9 47045U/mLと炎症反応及び腫瘍マーカーの上昇を認めた。当科初診時はWBC 9900/ μ L (Neut 53.2%)，CRP 0.45mg/dLと炎症反応上昇は軽度のみでCA19-9も105U/mLと低下していた。

腹部造影CT：胆嚢全体に石灰化を伴う著明な壁肥厚を認め慢性胆嚢炎が疑われたが底部の壁肥厚は不整であり，胆嚢癌の結腸肝弯曲部および腹壁への浸潤も否定できなかった (Fig. 1)。

MRI：浮腫状の胆嚢壁肥厚を認め慢性胆嚢炎が疑われたが底部の壁肥厚はT2強調画像で中等度信号を呈しており胆嚢癌も否定できなかった (Fig. 2)。

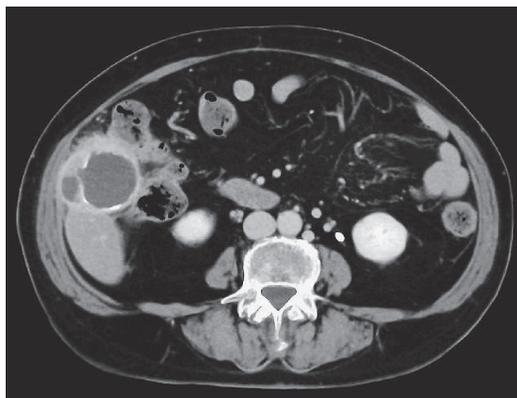


Fig. 1. 腹部造影CT. 胆嚢底部の壁内には低吸収の結節が散在している。

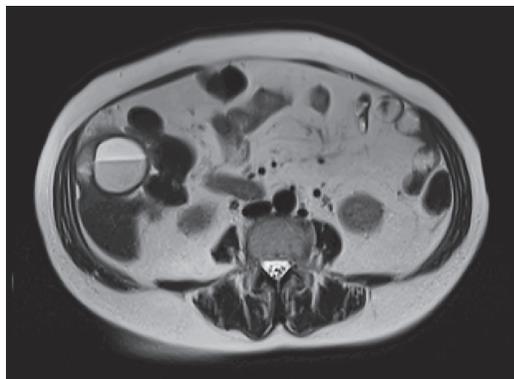


Fig. 2. MRI. T2強調画像で浮腫状の胆嚢壁肥厚を認める。

FDG-PET/CT：胆嚢底部にSUV (max) 値24.0の異常集積を認め胆嚢癌の結腸肝弯曲部および腹壁への浸潤が疑われた (Fig. 3)。

下部消化管内視鏡：上行結腸に2mmのIsポリープが指摘され，cold polypectomyでhyperplastic polypと診断された (Fig. 4)。

術前画像検査の総合的診断では慢性胆嚢炎が疑われたが底部の壁肥厚部は胆嚢癌を否定できなかったため周囲臓器に浸潤している進行癌の可能性を考慮して，腹腔鏡下手術ではなく開腹胆嚢摘出術を選択した。術前にCTガイド下針生検も考慮したが，偽陰性の可能性や悪性であった場合の穿刺による播種のリスクを考慮して行わなかった。胆嚢癌であった場合，術前病期診断はT4aN0M0 stage IVAとなり，胆嚢摘出・肝床切除・腹壁および結腸合併切除・領域リンパ節郭清術を行い，胆嚢管断端が術中迅速病理



Fig. 3. FDG-PET/CT. 胆嚢底部にSUV (max) 値24.0の異常集積を認めた。

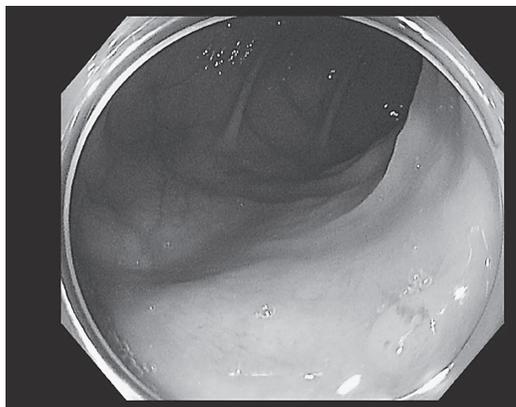


Fig. 4. 下部消化管内視鏡. 悪性所見は認めなかった.

検査で陽性であれば、肝外胆管切除・胆道再建を追加する方針とした。

手術所見：胆嚢は著明に腫大・緊満し壁肥厚も顕著であった。横行結腸や腹壁，大網，肝臓など周囲臓器に強固に癒着していたが肉眼的に悪性を示唆する所見は認められなかったため慢性胆嚢炎による炎症性癒着と判断し鋭的に切離した。胆嚢頸部から胆嚢管にかけての炎症は体部・底部に比べ比較的軽度であり，胆嚢管を結紮・切離し胆嚢を摘出した。胆嚢に切開を加え内腔を確認すると胆嚢頸部には胆嚢結石が嵌頓しており切開と共に多量の膿汁が流出し，粘膜には著明な炎症所見を認めたが腫瘍性病変は認めなかった。胆嚢はすべて術中迅速病理検査に提出したが肉眼的に明らかな腫瘍性成分を粘膜面に認めなかったため，横断面の複数箇所から標本作製し悪性所見を認めないことを確認した。術前に慢性胆嚢炎および胆嚢癌の両者の可能性を考慮していたが，迅速病理検査で悪性所見を認めなかったため胆嚢摘出術のみで手術を終了した。

切除標本肉眼所見：粘膜は黒色調で粗造化し底部には石灰化が散見され，断面は一部でやや黄染していた (Fig. 5a)。

病理組織学的所見：胆嚢壁全層に出血や肉芽組織および線維化を認めた (Fig. 5b)。黄染部分を拡大すると，脂肪を取り込んだ組織球 (foam cell) や多核巨細胞，吸収されず残存し



Fig. 5a. 切除標本肉眼の所見. 粘膜は黒色調で粗造化し，底部には石灰化が散見された. 断面は一部でやや黄染していた.



Fig. 5b. 病理組織学的所見. 胆嚢壁全層に出血や肉芽組織，繊維化を認めた.

た脂肪 (cholesterin cleft) を認めたが悪性所見は認められず，全割した永久標本でXGCと診断された (Fig. 5c)。

術後経過は良好で第8病日に退院された。

考 察

本症例は腹部造影CTおよびMRIの所見から慢性胆嚢炎が疑われたが胆嚢癌も否定できなかったため病期診断を目的としてFDG-PET/CTを施行し，FDG-PET/CTで胆嚢底部に異常集積を認めたため胆嚢癌が否定できず開腹手術を選択し，術中所見および病理組織学的検査結果からXGCと診断された1例である。XGCは胆嚢の黄色肉芽腫性炎症を特徴とする慢性胆

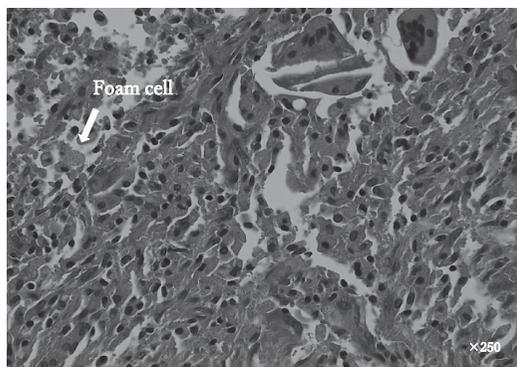


Fig. 5c. 肉眼的所見で黄染していた部分を拡大した病理組織学的所見. 多核巨細胞や cholesterol cleft および foam cell (矢印) の集簇を認めた. 悪性所見は認めなかった.

囊炎の1亜型で発症には胆嚢壁の解剖学的特性が大きく寄与しているとされ、胆嚢壁に存在する Rokitansky-Ashoff 洞 (RAS) が胆嚢結石嵌頓や胆嚢癌などによる内圧上昇により破綻し胆嚢壁内に胆汁が漏れると侵入した胆汁を組織球が貪食して胆汁に由来する脂質や foam cell を主体とした肉芽腫性組織球形炎症反応から XGC が発症するとされている²⁾³⁾. 有病率は胆嚢摘出症例の1.2~11.2%とされ、50歳以上の男性に多く、報告例の約90%に胆嚢結石が合併し、胆嚢結石合併例の70~80%で胆嚢頸部に結石が嵌頓していたとの報告もある⁴⁾. XGC に特異的な症状はないが多くの症例で腹痛、発熱、腫瘤触知などの症状を認めている³⁾.

CT や MRI が術前検査として頻用されているが、XGC は CT では漿膜下層の不整なびまん性壁肥厚と壁内の低吸収性結節が特徴とされ、胆嚢癌との鑑別として XGC では粘膜層の連続性が保たれ周囲との境界が低吸収な線としてみられる点が挙げられている³⁾. また、MRI では肥厚した胆嚢壁内に RAS 内の液体貯留である嚢胞状変化が T1 強調像で低信号、T2 強調像で高信号として描出され、肥厚した胆嚢壁内の嚢胞状部分が pseudolumen 様に描出されることが特徴とされる³⁾ が、これらの特徴はあるものの術前診断は困難なことが多いとされている⁶⁾. Makimoto らによると術後の病理組織

学的検査で XGC と診断された31例のうち術前は胆嚢癌疑いと診断された5例には全例で開腹胆嚢摘出術が施行され良性疾患と診断された症例では23例(74.2%)で腹腔鏡下に手術が開始されていたが、その内12例(52.2%)で高度の癒着や出血量増加などを理由に開腹胆嚢摘出術に途中で術式が変更されていた⁵⁾. これは XGC 以外の疾患における腹腔鏡下胆嚢摘出術から開腹胆嚢摘出術への移行率(5.2%)の約10倍で⁵⁾, XGC の特徴として剥離困難な高度の癒着が認められることが多いことを示しており、高度の癒着が術前画像検査で胆嚢癌との鑑別を困難にさせているとも考えられる.

XGC の FDG-PET/CT における異常集積頻度に関する報告は我々が検索し得た範囲ではみられなかったが、本症例を含む多くの症例で異常集積が報告されている. 医学中央雑誌で「黄色肉芽腫性胆嚢炎」「PET-CT/FDG-PET」をキーワードに2008年以降で検索したところ、術前に FDG-PET/CT で異常集積を認めたが術後の病理組織学的検査で XGC と診断された症例が20例報告されていた⁶⁻²³⁾ (Table 1). 本症例を加えた21例で検討したところ男性13例、女性8例で年齢は51~79歳、SUV (max) 値は5.8~20.35であり11例で胆嚢癌と術前診断されていた. FDG-PET/CT は良悪性の鑑別にしばしば用いられるが炎症高度な良性疾患にも集積亢進が認められ、単位体積当たりの投与量に対する集積比である SUV 値を絶対値として評価することは困難とされているため XGC のように偽陽性を示す場合がある. 胆嚢癌と術前診断されていた症例で術中迅速病理検査を施行しなかったのは5例⁶⁻⁷⁾¹⁰⁾¹⁴⁾¹⁸⁾ で、うち4例⁶⁻⁷⁾¹⁰⁾¹⁴⁾ で結果的に膵頭十二指腸切除などの過大手術が施行されていたが術中迅速病理検査を施行した6例では2例¹²⁾¹⁶⁾ に留まっており、過大手術を回避するために術中迅速病理検査は有用であったと考えられる.

術中迅速病理検査の有用性に関しては村上¹⁷⁾ も述べているが XGC の6.8~15%に胆嚢癌が合併しているとの報告もあり³⁾, 術中迅速病理検査を行う場合でも切り出し部位の設定な

Table 1. FDG-PET/CTで異常集積を示したXGC報告例

Author	Year	Age/Sex	SUVmax	preoperative diagnosis	intraoperative examination	operative procedure
川口 ⁽⁶⁾	2008	73/M	8.1	胆嚢癌	施行せず	胆嚢摘出+肝床切除+肝外胆管切除術
石川 ⁽⁷⁾	2009	71/M	5.9	胆嚢癌	施行せず	胆嚢摘出+肝中央二区域切除+2群リンパ節郭清術+肝外胆管切除術
金城 ⁽⁸⁾	2010	51/M	不明	胆嚢炎	施行せず	拡大胆嚢摘出術
金城 ⁽⁸⁾	2010	54/M	不明	胆嚢炎	施行せず	拡大胆嚢摘出術
Mori ⁽⁹⁾	2010	63/F	8.8	胆嚢癌	陰性	拡大胆嚢摘出術
筒井 ⁽¹⁰⁾	2010	61/F	6.87	胆嚢癌	施行せず	拡大胆嚢摘出+肝外胆管切除術
内藤 ⁽¹¹⁾	2011	59/M	13	胆嚢癌	陰性	拡大胆嚢摘出術
内藤 ⁽¹¹⁾	2011	64/F	12.9	胆嚢癌	陰性	拡大胆嚢摘出術
高原 ⁽¹²⁾	2012	70/F	15	胆嚢癌	陰性	胆嚢摘出+肝床切除+十二指腸球部切除+横行結腸部分切除術
小倉 ⁽¹³⁾	2013	70代/M	15	XGC	陰性	胆嚢摘出術
辻田 ⁽¹⁴⁾	2013	65/M	18.2	胆嚢癌	施行せず	胆嚢摘出+肝床切除+十二指腸球部切除+横行結腸部分切除術
芳賀 ⁽¹⁵⁾	2013	54/F	不明	炎症性疾患	陰性	胆嚢摘出術
笠島 ⁽¹⁶⁾	2014	60/F	7.6	胆嚢癌	陰性	胆嚢摘出+肝床切除+肝外胆管切除術
村上 ⁽¹⁷⁾	2014	57/F	9.6	胆嚢癌	陰性	胆嚢摘出+肝床切除+結腸部分切除術
長尾 ⁽¹⁸⁾	2014	77/M	8.5	胆嚢癌	施行せず	胆嚢摘出+肝床切除術
益田 ⁽¹⁹⁾	2014	67/M	7.6	XGC	陰性	胆嚢摘出+肝右葉切除+肝外胆管切除+門脈合併切除再建+十二指腸部分切除+結腸部分切除
高柳 ⁽²⁰⁾	2014	63/M	5.0(総胆管)	XGC	施行せず	胆嚢摘出術
野村 ⁽²¹⁾	2014	79/M	15.9	XGC	陰性	胆嚢摘出+肝床切除術
安達 ⁽²²⁾	2017	70/M	14.2	胆嚢炎	陰性	胆嚢摘出術+右半結腸切除術
Vaneet ⁽²³⁾	2020	57/M	20.35(肝V)	胆嚢炎	陰性	胆嚢摘出術
本症例	2022	71/F	24	胆嚢炎	陰性	胆嚢摘出術

ど慎重な対処が必要と思われる。

結 語

FDG-PET/CTで異常集積を認めたXGC症例を経験した。XGCと胆嚢癌の術前画像検査での鑑別は困難な場合があり、術中迅速病理診断は有用であるが治療方針の決定には慎重な判

断が望まれる。

本論文に関して、発表者らに開示すべき利益相反関連事項はない。

なお、本論文の要旨は第123回日本外科学会定期学術集会(2023年4月、東京)において発表した。

文 献

- Weismann RE, Mc Donald JR. Cholecystitis. A study of intramural deposits of lipids in twenty-three selected cases. *Arch Pathol*, 45: 639-657, 1983.
- 松本耕太郎, 清水周次, 山口幸二, 千々岩一男, 高嶋雅樹, 田中雅夫. 胆嚢頸部癌を併存した黄色肉芽腫性胆嚢炎(xanthogranulomatous cholecystitis)の1例. *日消外会誌*, 31: 2354-2358, 1998.
- 豊川秀吉, 権 雅憲. 黄色肉芽腫性胆嚢炎の診断と治療. *胆道*, 23: 649-653, 2009.
- 松村 勝, 鳥越貴行, 金光秀一, 皆川紀剛, 日暮愛一郎, 岡本好司, 山口幸二. 胆嚢癌と鑑別困難であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例—本邦報告81例の検討. *胆道*, 24: 219-226, 2010.
- Shinichiro Makimoto, Tomoya Takami, Kotaro Hatano, Naoki Kataoka, Tomoyuki Yamaguchi, Masafumi Tomita, Yoshiharu Shono. Xanthogranulomatous cholecystitis: a review of 31 patients. *Surg Endosc*, 35: 3874-3880, 2021.
- 川口 耕, 藤 信明, 伊藤 剛, 中村憲司, 谷口弘毅, 内藤和世. PET陽性を示し進行胆嚢癌との鑑別が困難であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1切除例. *日臨外医会誌*, 69: 3266-3271, 2008.
- 石川博人, 松本亮一, 広津 順, 末吉 晋, 島松一秀, 木下壽文, 白水和雄. 胆嚢癌と鑑別困難であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. *日臨外医会誌*, 70: 3100-3104, 2009.
- 金城達也, 砂川宏樹, 當山鉄男, 稲嶺 進, 座波久光, 大城直人. 胆嚢癌疑いのため術式選択に苦慮した

- 黄色肉芽腫性胆嚢炎の2例. 日臨外医学会誌, 71: 1832-1836, 2010.
- 9) Akira Mori, Ryuichiro Doi, Yoshikuni Yonenaga, Shuichiro Nakabo, Shujiro Yazumi, Junya Nakaya, Fumihiko Kono, Toshiaki Manabe, Shinji Uemoto. Xanthogranulomatous cholecystitis complicated with primary sclerosing cholangitis: report of a case. *Surg Today*, 40: 777-782, 2010.
- 10) 筒井邦彦, 鎌田英紀, 小野昌弘, 有友雄一, 藤森崇行, 内田尚仁, 正木 勉. CA19-9 高値と肝実質浸潤所見, および FDG-PET 異常集積を伴い, 胆嚢癌との鑑別が困難であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 香川内科医学会誌, 46: 66-70, 2010.
- 11) 内藤雅人, 古山裕章, 政野裕紀, 佐々木勉, 吉村玄浩. FDG-PET 陽性であり, 進行胆嚢癌と鑑別困難であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の2例. 臨外, 66: 681-685, 2011.
- 12) 高原秀典, 永吉直樹, 横山 正, 實 光章. CT および FDG-PET 検査にて胆嚢癌を疑い開腹手術を行った黄色肉芽腫性胆嚢炎1. 胆と膵, 33: 783-787, 2012.
- 13) 小倉 健, 栗栖義賢, 増田大介, 井上善博, 瀧井道明, 井元 章, 江戸川祥子, 大濱日出子, 寺西真章, 林 道廣, 梅垣英次, 内山和久, 樋口和秀. EUS-FNA で診断し, FDG-PET による経時的変化を観察しえた黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 日消誌, 1640-1648, 2013.
- 14) 辻田英司, 前田貴司, 武石一樹, 松田裕之, 石田照佳, 山下洋市, 佐伯浩司, 川中博文, 内山秀昭, 副島雄二, 森田 勝, 池田哲夫, 前原喜彦. CT, MR および FDG-PET 検査にて胆嚢癌を疑った黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 臨と研, 90: 1871-1874, 2013.
- 15) 芳賀祐規, 露口利夫, 酒井裕司, 坂本 大, 西川貴雄, 杉山晴俊, 中村昌人, 大塚将之, 宮崎 勝, 横須賀収. 閉塞性黄疸を合併し胆嚢癌との鑑別に難渋した陶器様胆嚢の1例. *Prog Dig Endosc*, 83: 194-195, 2013.
- 16) 笠島裕明, 森本芳和, 弓場健義, 藤井 眞, 赤丸祐介, 山崎芳郎. 診断に苦慮した FDG-PET 陽性黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 日外科系連会誌, 39: 264-270, 2014.
- 17) 村上剛平, 森本芳和, 弓場健義, 藤井 眞, 赤丸祐介, 山崎芳郎. 術中診断より過侵襲手術を回避しえた FDG-PET 陽性黄色肉芽腫性胆嚢炎の1切除例. 日外科系連会誌, 39: 1175-1180, 2014.
- 18) 長尾美津男. CA19-9 高値および FDG-PET 陽性を呈した黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 日外科系連会誌, 39: 751-755, 2014.
- 19) 益田邦洋, 吉田 寛, 内藤 剛, 海野倫明. 【胆道癌として外科切除された鑑別困難病変の検証—画像と病理所見の対比—】胆嚢癌と鑑別困難な黄色肉芽腫性胆嚢炎切除例. 胆と膵, 35: 283-289, 2014.
- 20) 高柳卓矢, 藤田祐司, 石井 研, 関野雄典, 細野邦広, 中島 淳, 窪田賢輔. CT が胆道癌との鑑別に有用であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. *Prog Dig Endosc*, 85: 140-141, 2014.
- 21) 野村尚弘, 山下克也, 武藤俊博, 岡本喜一, 佐藤健, 市原 透. CA19-9 異常高値と FDG-PET 陽性を示した黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 外科, 76: 204-208, 2014.
- 22) 安達 慧, 橋本和彦, 野中亮児, 文 正浩, 藤江裕二郎, 藤田正一郎, 小嶋啓子, 花井 淳, 今岡真義, 大西 直. 経時的な画像変化を観察でき胆嚢癌との鑑別が困難であった黄色肉芽腫性胆嚢炎の1例. 癌と化療, 44: 1925-1927, 2017.
- 23) Jearth Vaneet, Patil Prachi, Patkar Shraddha, Goel Mahesh, Mehta Shaesta, Deodhar Kedar, Rao Vidya. 局所進行胆嚢癌に類似した免疫グロブリン G4 関連胆嚢炎. *Clin J Gastroenterol*, 13: 806-811, 2020.