

肝外胆汁性嚢胞いわゆる“biloma”の1治験例

佐賀医科大学消化器外科

廣橋 喜美 原田 貞美 佐藤 清治
副島真一郎 樋高 克彦 久次 武晴

A CASE OF EXTRAHEPATIC BILIARY CYST (SO-CALLED “BILOMA”)

Yoshimi HIROHASHI, Sadami HARADA, Seiji SATOH,
Shinichiro SOEJIMA, Katsuhiko HIDAKA and Takeharu HISATUGU

Saga Medical School Department of Gastroenterological Surgery

索引用語 : biloma, 総胆管結石症

I. はじめに

Biloma は, 1979年 Gould ら¹⁾が肝外胆汁性嚢胞に対し初めて用いた呼称である。近年, 超音波検査, computed tomography (以下 CT) などの画像診断の発達に伴いその報告は次第に増加しつつある。しかし, 本邦での報告はいまだ数例をみるにすぎない²⁾⁻⁴⁾。

今回われわれは, 約40年前に胆嚢切石術を施行され, 上腹部痛と黄疸を主訴に来院, 総胆管結石症に biloma を合併した症例を経験したので文献的考察を加え報告する。

II. 症 例

患者 : 76歳, 男性。

主訴 : 上腹部痛, 黄疸。

家族歴 : 特記事項なし。

既往歴 : 30歳時に他院にて急性胆嚢炎を伴う胆嚢結石症で胆嚢切石術をうけた。以後, 腸閉塞で2度開腹術をうけた。

現病歴 : 昭和61年12月16日上腹部痛出現。2日後近医受診し入院, 黄疸を認められ徐々に増強するため, 12月25日当院受診し緊急入院となった。

入院時現症 : 血圧148/60mmHg, 脈拍106/分・整, 体温38.5℃, 皮膚・眼球強膜に黄染あり。心肺系に異常なし。腹部所見は上腹部やや膨満, 左季肋部に圧痛あり。右季肋部, 正中心窩部から臍下3cm にわたる術創瘢痕あり。同部に腹壁ヘルニアを認めた。腸雑音亢進。

入院時検査成績 : 総ビリルビン値は2.8mg/dl と軽

表1 入院時検査成績

末梢血球盤		γGTP	300 I.U./ℓ
WBC	5400/mm ³	ChE	480 I.U./ℓ
RBC	345×10 ⁴ /mm ³	T-Bil	2.8 mg/dl
Hb	12.2 g/dl	D-Bil	1.6 mg/dl
Ht	34.2%	AMY	241 I.U./ℓ
Plt	24.7×10 ⁴ /mm ³	その他	
血液生化学検査		ESR	72.6mm/h
T.P.	5.4 g/dl	αFet	10 ng/ml以下
Alb	2.7 g/dl	CEA	4.4 ng/ml
GOT	22 I.U./ℓ	CA19-9	183 U/ml
GPT	18 I.U./ℓ		
ALP	670 I.U./ℓ		

度上昇し, アルカリフォスファターゼとγ-GTPの胆道系酵素の上昇を認めた。しかし, 血清アミラーゼ値は正常で, その他肝機能も正常であった。血沈は亢進していたが, 白血球増多は認めなかった。腫瘍マーカーはαフェトプロテインは正常であったが, carcinoembryonic antigen (以下 CEA), carbohydrate antigen 19-9 (以下 CA19-9) はやや高値であった (表1)。

III. 経 過

入院後, 直ちに腹部超音波検査, 腹部CTを施行(図1)。肝内・肝外胆管の著明な拡張を認めた。総胆管末端部に径15mmの総胆管結石の所見を認めた。胆嚢は明らかでなく, 肝周囲から肝外へ連続する嚢胞状の構造物を認め, 総胆管結石症と肝外性嚢胞と診断した。その後保存的治療を続けたが, 徐々に上腹部膨満と黄疸増強するため再度CT施行した(図2)。前回の嚢胞は遊離腹腔内へ著明に拡大し, 上腹部の大半を占めており, その内部のCT値が8程度で胆汁のCT値に近い胆汁性嚢胞いわゆるbilomaを疑った。次いで胆道シンチグラムを施行したが, 胆道への核種(^{99m}Tc)の排泄は著明に遅延し, また明らかな嚢胞との交通は認められなかった。そこで超音波ガイド下に経皮的穿刺・ドレナージを試みたところ, 同部より約1,700mlの

<1989年5月8日受理>別刷請求先 : 廣橋 喜美
〒840-01 佐賀市鍋島町大字鍋島三本杉 佐賀医科大学消化器外科

図1 腹部CT・初回(昭和61年12月26日)肝前面にくっつかのくびれを有するcysticな嚢胞状構造を認める。肝内胆管、総胆管の拡張を認めるが、胆嚢は明らかでない。

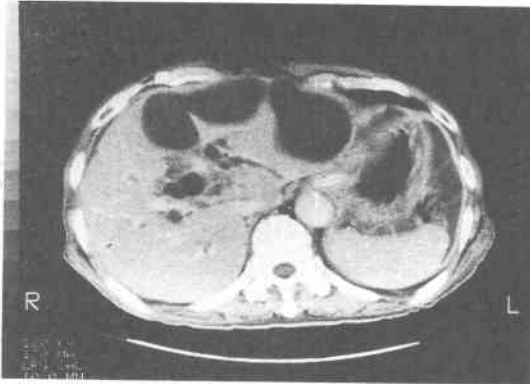
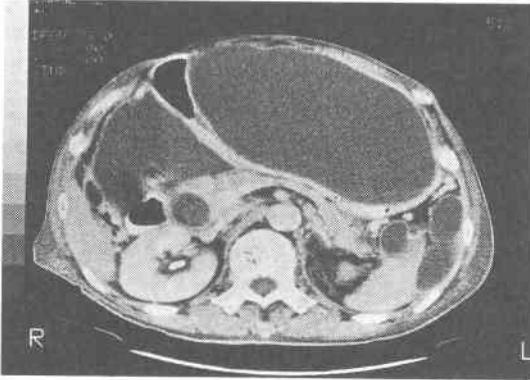


図2 腹部CT・2回目(昭和62年1月6日)嚢胞状のmassは著明に増大。右側を肝左葉および鎌状間膜で、上方を横隔膜で、後方を胃と胃・脾靱帯および脾で、右方は十二指腸、結腸で囲まれている。内部に隔壁形成が認められる。総胆管内に結石像が認められる。



胆汁様排液を採取し生化学検査にてビリルビンを証明し、bilomaの確診をえた。同排液よりの細菌培養では明らかな細菌の感染は認められなかった。ドレナージュチューブはMalecot catheter(14Fr Cook社)を使用し、持続的ドレナージュとした。

Bilomaドレナージュ後、腹部膨満は著明に改善し、黄疸も徐々に軽減した。そこで胆汁漏出部位つまり胆道系とbilomaの交通部位の確認をするため、drip infusion cholangiography・胆道シンチグラム・endoscopic retrograde cholangiography(以下ERC)を施行した(図3)。いずれの検査においても明らかな交通は認められなかった。診断は総胆管結石、bilomaとした。

図3 ERC(昭和62年1月30日)総胆管径は40mmと拡張。内部に2個の結石像を認める。胆嚢は造影されていない。明らかなbilomaとの交通は認められない。右下端のチューブは、経皮的ドレナージュチューブである。



IV. 手術

昭和62年2月18日開腹術を施行。3回におよぶ開腹術既往で癒着が著明で、これを剝離した。bilomaは横行結腸の上縁に沿い胃のほぼ前面で左肝下面に存在し著明に縮小しており、挿入されたドレナージュチューブに沿って嚢胞切開を行いその壁を一部切除し組織検査とした。該チューブを抜去し新たに嚢胞腔にネラトン管9号を設置した。胆嚢は8mm×8mmの瘢痕状となっており、総胆管前面を穿刺して術中胆管造影を施行(図4)。胆管外への造影剤の逸脱なく、総胆管切開・切石術(ビリルビン石灰石2個と胆砂)施行した。さらに総胆管切開口より胆嚢管内切石(ビリルビン石灰石胆砂1個)を施行。総胆管ドレナージュはネラトン管9号を設置し、ウィンスロー孔にゴム管とペンローズドレナージュを挿入固定した。

V. 術後経過

術後CTでbilomaはほぼ消失し、総胆管ドレナージュチューブ抜去後、軽快退院となった。退院後の経過も順調で、1年後の今日bilomaの再発を含め胆道系の愁訴はない。

またbilomaの壁の組織像を図5に示した。主として脂肪組織よりなり、一部に線維性結合組織が認められた。

図4 術中胆管造影. 総胆管より造影剤を注入. 総胆管内に結石陰影を認めるが, 肝内胆管, 総胆管壁に異常を認めず, 瘻孔も存在しない.



図5 嚢胞壁病理組織像(HE染色×8). 主として脂肪組織よりなり一部に線維性結合組織を認める.



VI. 考 察

Biloma の定義は, 胆道系の破綻により腹腔内へ漏出した胆汁が上皮形成により被包化され生じた肝外胆汁性嚢胞とされている¹⁾. その被包化の機序については, Vazquez らは, 急速な濃縮された大量の胆汁の漏出が著明な炎症反応を来し, 胆汁性腹膜炎へと進展しやすいが, 少量の濃縮されない胆汁の緩徐な漏出は,

表2 biloma の報告例

報告者	掲載年	症例数	原因					治療		
			術後	外傷	PTCD	その他	開腹術	内視鏡	開腹+内視鏡	保存的
Gould L. et al	1979	1		1			1			
Zegel HG. et al	1981	5	3	1	1	1	4	1		
Caride VJ. et al	1982	3	1	1		1		3		
Vujic I. et al	1982	3		2	1		2	1		
Esensten M. et al	1983	5		5				1		4
Mueller PR. et al	1983	11	9	1	1			9	2	
Kuligowska E. et al	1983	9	6	1	2			7	2	
Middleton PR. et al	1984	1				1		1		
Vazquez JL. et al	1985	18	12	2	4		2	11	2	3
Makhija M. et al	1985	1	1						1	
石橋ら	1982	1				1	1			
西野田ら	1984	1		1					1	
谷本ら	1986	1				1			1	
自験例	1987	1	1						1	
総計		61	33	15	8	5	10	36	8	7

軽度の炎症反応にとどまり, 大網・腸間膜で覆われ, そこから被包化が始まるとしている⁵⁾.

このような病態についての報告は欧米においては古くより散見されるが^{6)~8)}, 1979年, Gould らが初めてこの病態に“biloma”という名称を使用しており, 以後今日まで表2に示すごとき報告をみている^{1)~5)10)17)}. 本邦では, 1982年の石橋らの報告が最初で以後自験例を含め3例の報告をみるにすぎず, 比較的最近注目されてきた疾患といえる^{2)~4)}.

Biloma の発生原因についてこれまでの報告をまとめてみると表2に示すごとく胆嚢摘出術, 肝切除術などの肝胆道系の術後に生じるものが最も多く全体の54%を占めている. 次いで交通事故などによる腹部外傷後生じるものが25%で, 両者を合わせると約80%に達している. 一方, 最近では減黄術として頻繁に施行されるようになった経皮経肝胆管ドレナージ(percutaneous transhepatic cholangiodrainage: 以下PTCD)もその発生原因としての報告がなされている¹²⁾¹⁴⁾¹⁵⁾.

Biloma の臨床症状については, 胆汁性腹膜炎を示唆する症状もなく, 徐々に嚢胞が増大し周囲臓器の圧迫症状が出現して初めてその存在を疑われることが特徴で, 今回われわれの症例では, 総胆管結石の嵌頓による黄疸発生がその発見誘因となっており, biloma に起因すると思われる症状は腹部膨満感のみであった. 一方画像診断では, CT・超音波検査が有用なことは言うまでもないが, 胆道シンチグラムについてもその有用性が報告されている^{5)11)13)~15)17)}. しかし, いずれにしる確定診断は, 超音波ガイド下の経皮的ドレナージにより嚢胞内容が胆汁であることを証明することである.

それは同時に、治療法でもあり、biloma は以前は開腹術によるドレナージが施行されていたが、最近の報告ではほとんど経皮的ドレナージのみで治癒している。

本症例の場合は40年前に胆道の手術をうけ、その後新たに総胆管結石を生じ、それが嵌頓を起し胆道内圧の上昇から胆道系の破綻を生じ、biloma の形成に至ったものと推測された。実際、胆道系と biloma の交通は証明されなかったが、初回の CT 上、biloma は肝前面に限局して存在していることから考えて、総胆管結石に伴う胆管炎が、肝内胆管へ波及し胆管壁の脆弱化を来すとともに、総胆管末端に結石の嵌頓が起こり急速に胆道内圧が上昇し、肝前面のいずれかの胆管壁の破綻を生じ胆汁の漏出が起こったと推測された。この際、過去数回にわたる開腹術のための著明な癒着・瘢痕により、胆汁は腹腔内に急速に広がることなく、被包化されながら腹腔内を緩徐に拡大していったと考えられた。一方、biloma 内に経皮的ドレナージを造設した前後より血清ビリルビン値は正常化に向かっていることから、総胆管結石が嵌頓状態より解除された可能性が高く、十二指腸への胆汁のドレナージと biloma 内の胆汁のドレナージが効き始めたことにより胆道内圧が正常化し、比較的短期間に胆管壁破綻部の修復・閉鎖が起こったため、その後の諸検査にて biloma と胆道系との交通が証明できなかったものと推測された。

確定診断は超音波ガイド下にドレナージを行い胆汁を確認して行ったが、後日開腹術も行い、その嚢胞壁を採取し、その組織学的検索を行うことができた。その組織像は図5に示すごとく、脂肪組織を主体としており一部に線維性結合組織を認め、大網・漿膜の一部が biloma の壁を構成していると考えられた。また線維性結合組織は、biloma 発症から手術まで50日も経過しているための変化と考えられた。われわれの調べる範囲においては、biloma 壁の組織学的検索を行った報告はなく、きわめて興味深い所見と考えた。

VII. 結 語

40数年前に胆道の手術をうけ、今回総胆管結石症に biloma を合併した症例を経験したので、その手術術式を示し、文献的考察を行い、biloma 壁の組織像を加えて報告した。

本論文の要旨は第30回日本消化器外科学会総会（昭和62年7月2日、東京）において発表した。

文 献

1) Gould L, Patel A: Ultrasound detection of

extrahepatic encapsulated bile: (Biloma". Am J Roentgenol 132: 1014—1015, 1979

- 2) 石橋大海, 坂田之訓, 福田敏郎ほか: 腹部超音波検査法により肝内胆管との交通部位が確認できた肝外性胆汁性嚢胞の1例. 肝・胆・膵 7: 301—304, 1983
- 3) 西和田敬, 江崎友通, 開 信郎ほか: 多発外傷に併発した胆汁性肝嚢胞の1症例. 奈良医誌 36: 50—55, 1984
- 4) 谷本 晃, 坂本敦司, 田中健二ほか: 総胆管結石嵌頓に合併した肝外胆汁性嚢胞 (Biloma) の1例. 胆と膵 7: 1053—1058, 1986
- 5) Vazquez JL, Thorsen MK, Dodds WJ et al: Evaluation and treatment of intraabdominal Bilomas. Am J Roentgenol 144: 933—938, 1985
- 6) Henson SW, Hallenbeck GA, Gray HK et al: Benign tumors of the liver. Surg Gynecol Obstet 104: 302—306, 1957
- 7) Jones HV, Harley HRS: Traumatic cyst of the liver. Br J Surg 57: 468—470, 1970
- 8) Lawson TL: Chronic subcapsular hepatic bile abscess. A rare complication of percutaneous transhepatic cholangiography. Am J Gastroenterol 61: 383—386, 1974
- 9) 神野正博, 小西孝司, 磯部次正ほか: 腹部鈍の外傷後にみられた巨大胆汁性仮性嚢胞の1治験例. 胆と膵 3: 1369—1372, 1982
- 10) Zegel HG, Kurtz AB, Perlmutter GS et al: Ultrasonic characteristics of Bilomas. J Clin Ultrasound 9: 21—24, 1981
- 11) Caride VJ, Gibson DW: Non invasive evaluation of bile leakage. Surg Gynecol Obstet 154: 517—520, 1982
- 12) Vujic I, Brock JG: Biloma: Aspiration for diagnosis and treatment. Gastrointest Radiol 7: 251—254, 1982
- 13) Esensten M, Ralis PW, Colietti P et al: Posttraumatic intrahepatic Biloma: Sonographic diagnosis. Am J Roentgenol 140: 303—305, 1983
- 14) Mueller PR, Ferrucci JJT, Simeone JF et al: Detection and drainage of Bilomas: Special considerations. Am J Roentgenol 140: 715—720, 1983
- 15) Kuligowka E, Schlesinger A, Miller KB et al: Biloma: A new approach to the diagnosis and treatment. Gastrointest Radiol 8: 237—243, 1983
- 16) Middleton JR, Wolper JC: Hepatic Biloma complicating sickle cell disease. Gastroenterology 86: 743—744, 1984
- 17) Makhija M, Schultz S, McManus KT: Scintigraphy of bile leakage following cholecystectomy. Clin Nucl Med 10: 848—850, 1985