

索状の隔壁を有する総胆管隔壁症の1治験例

久留米大学第2外科

田代 和弘 才津 秀樹 中山 和道

A CASE REPORT OF SEPTUM FORMATION OF COMMON BILE DUCT

Kazuhiro TASHIRO, Hideki SAITSU and Toshimichi NAKAYAMA

The 2nd Department of Surgery, Kurume University Medical School

索引用語 : anomalies of bile duct, septum formation of common bile duct

はじめに

総胆管隔壁症はきわめてまれな疾患であるが、最近の診断技術の向上により、報告される機会が多くなってきている。欧米では1939年Carter¹⁾の報告にはじまり、本邦でも1970年大城²⁾の報告以来、10数例を数えるのみである。今回、われわれは総胆管隔壁形成を呈した1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：67歳，男性。

主訴：右季肋部痛。

既往歴：昭和27年肺結核に罹患し、2年後肺切除。昭和40年十二指腸潰瘍にて内科的治療を受ける。

家族歴：父が胃癌で死亡。

現病歴：昭和57年頃近医にて精密検査を受け、胆石症を指摘された。手術を勧められたが、とくに自覚症状がないのでそのまま放置した。昭和62年11月頃、右季肋部痛を時々自覚するようになり、近医にてその痛みは胆石症によるものだろうといわれ、当院外科を紹介された。今回手術目的にて入院となる。現在までに黄疸の既往はない。

現症：貧血・黄疸はみられない。左肺野にはラ音が聞かれ、右胸部には肺切除の手術痕がみられる。

検査成績：1) 生化学検査結果：Table 1 に示すように肝機能検査に異常はなく、腫瘍マーカーも carcinoembryonic antigen (CEA) 2.0ng/ml, alpha-fetoprotein (AFP) 4ng/ml, carbohydrate antigen 19-9 (CA19-9) 32U/ml と正常である。血清学的にはワッセルマン反応が強陽性である。

2) X線検査所見：胸部X線写真で右下肺野に淡い斑状の異常陰影がみられる。腹部単純写真に結石像や異常ガス像などはみられないが、右横隔膜の挙上がみられる。経静脈性胆道造影 (drip infusion cholecystography; 以下 DIC) による造影では胆嚢内に結石像がみられ、上部胆管が軽度拡張している。また、三管合流部より約2cm 下方に septum とと思われる索状陰影をみとめるが明らかではない (Fig. 1)。上部消化管透視では、十二指腸に憩室がみられるのみで、乳頭部は正常である。

3) 腹部超音波検査 (ultrasonography; 以下 US) : 胆嚢内には acoustic shadow を伴う strong echo (SE) がみられ、体位変換にて移動するため結石と考えられる。また、debris 内にも小結石像がみられる。肝内胆管や総胆管の拡張はなく、septum は描出されてい

Table 1 Laboratory data on admission

1) Liver function test	3) Serological test
T.Bil 0.71 mg/dl	CRP (-)
D.Bil 0.23 mg/dl	HBs-Ag (-)
GOT 16.6 K.U.	HBs-Ab (-)
GPT 11.9 K.U.	Wa-R (≡)
LDH 225 W.U.	4) Tumor maker
ALP 7.8 K.A.U.	CEA 2.0 ng/ml
T.P. 7.4 g/dl	AFP <4 ng/ml
T.T.T. 3.94 Ku. U	CA 19-9 32 U/ml
Z.T.T. 8.07 Ku. U	Ela-I 250 ng/dl
CH-E 0.96 ΔpH	5) Coagulation test
ICG R15 6.5 %	PT 11.4 sec
2) Hemogram	APTT 27.1 sec
RBC 458 × 10 ⁴ /mm ³	HPT 80.0 %
WBC 3800 /mm ³	
Hb 14.9 g/dl	
Ht 45.9 %	
Plt 9.6 × 10 ⁴ /mm ³	

<1989年9月19日受理> 別刷請求先：田代 和弘

〒830 久留米市旭町67 久留米大学医学部第2外科

い (Fig. 2a, 2b). 以上の検査所見により, 胆石症および総胆管隔壁症疑いにて手術を施行した.

手術所見: 上腹部正中切開にて開腹するに, 胆嚢は鶏卵大に腫大し, 頸部に結石が嵌頓していた. 内容液は水様性であった. 術中胆道造影を2回行ったところ,

術前のDICにて septum を疑われた部位に狭窄がみられ, それより上部の胆管に拡張が認められた (Fig. 3a). そこで Fig. 3b のように総胆管を切開し, 内部を検索したところ5時から7時方向にかけて, 索状の septum を認めた. それを半周状に切除し, 5-0 Dexon にて連続で縫合した. 総胆管には6号 T-tube を留置し,

Fig. 1 Drip infusion cholecystography
DIC showed septum in the common hepatic duct (▶), and calcified shadow in the gallbladder (→).



Fig. 2 Ultrasonography

(a) Right subcostal scan demonstrated strong echo (SE) with acoustic shadow (AS) in the gallbladder.
(b) Right intercostal scan showed undefined septum.

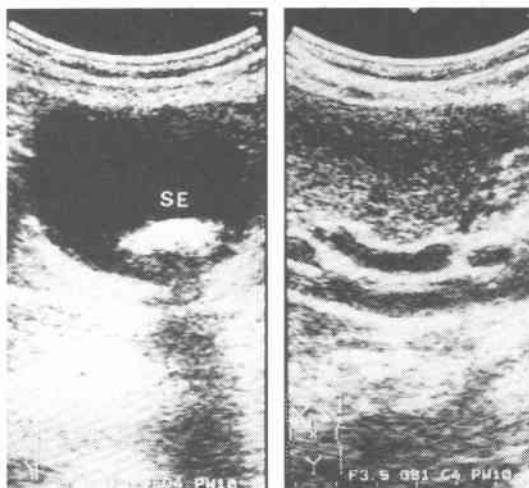


Fig. 3 Intra-operative cholangiography and schema of operation
(a) demonstrated string-shape shadow defect below the cystic duct, and it was recognized as septum (→) Common hepatic duct was slightly dilated. (▶) (b) Schema of operation: (---) incised line.

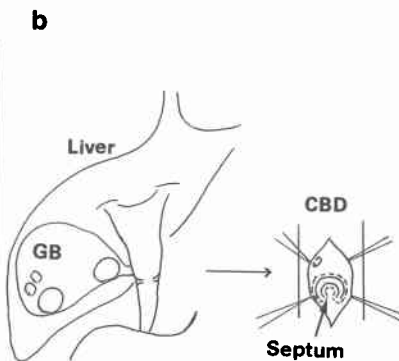
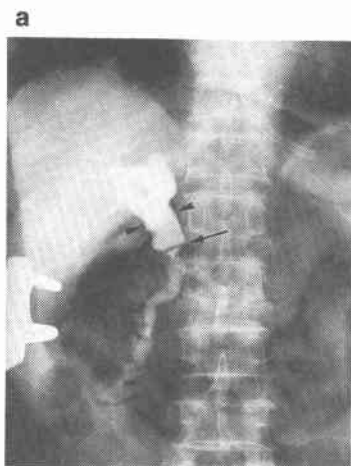
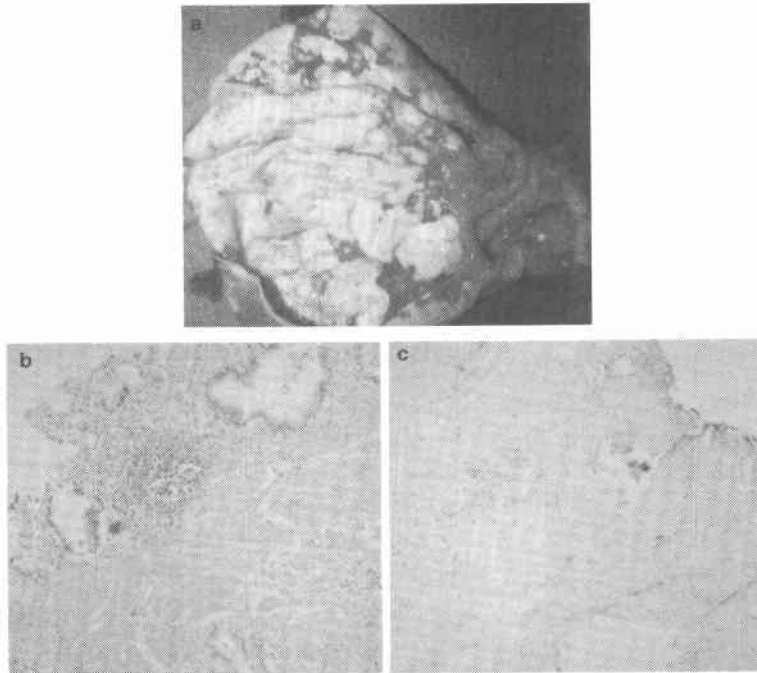


Fig. 4 Gross photograph and pathologic histology
 (a) Gross appearance of resected gallbladder (GB). (b) Microscopic finding of resected GB showed infiltration of inflammatory cells in the submucosa. (H.E. staining, $\times 100$). (c) Microscopic finding of resected septum showed only fibrous tissue, and not epithelioid cells. (H.E. staining, $\times 100$).



手術を終了した。

摘出標本および病理組織学的所見：Fig. 4a は摘出胆嚢であるが全体的に壁の肥厚がみられ、慢性の炎症所見と考えられる。組織像では粘膜上皮に悪性所見はみられず、粘膜下層や筋層に強い繊維化が認められる。また、小円形細胞を中心とした炎症性細胞の浸潤がみられる (Fig. 4b)。一方、切除された隔壁には上皮様細胞成分はなく、結合織成分のみで、炎症性細胞の浸潤などもみられない (Fig. 4c)。

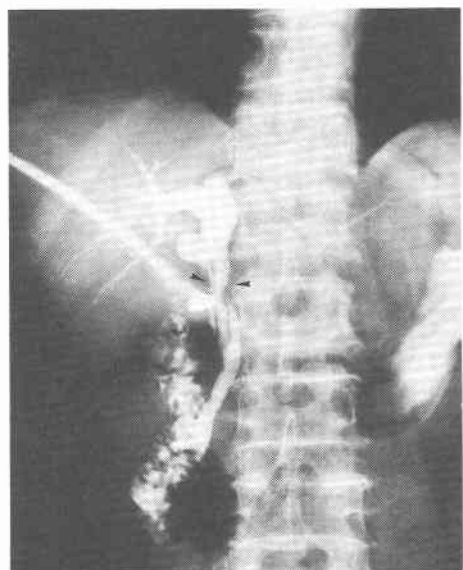
術後胆道造影：術後の T-tube からの胆道造影所見は Fig. 5 のごとく septum が認められた部位に軽度狭窄がみられたが、造影剤の通過は良好であった。他に隔壁の存在を疑わせる陰影はみられず、遺残結石も認めない。

術後経過：術後経過は良好で、退院後元気に社会復帰している。

考 察

最近 is computed tomography (CT), magnetic resonance imaging (MRI) や US など診断技術の向上

Fig. 5 Postoperative cholecystography. The slight stenosis was observed where we inserted T-tube (▶), and Papilla of Vater was normal.



により種々の疾患が術前に診断されるようになってきている。総胆管隔壁症も例外ではなく報告される機会が多くなってきている。胆嚢および胆管の奇形あるいは異常について、Rothmanら³⁾の分類では、総胆管開口異常、重複胆管、総胆管嚢腫、先天性胆道閉鎖症、胆嚢管の形態異常および副肝管などが掲載されている。そのなかでも、肝外胆管に、胆管走行に直交する形の隔壁を有する症例は、欧米では、Carterら(1939)¹⁾、Caroliら(1954)⁴⁾、Longmire(1964)⁵⁾、Cornetら(1966)⁶⁾、Melhemら(1966)⁷⁾、Fisherら(1968)⁸⁾らの報告があり、本邦報告例では1970年の大城ら²⁾の報告をはじめとして、1981年伊関ら⁹⁾の集計した10例¹⁰⁾⁻¹³⁾および内藤ら¹⁴⁾の2例、1984年粟津ら¹⁵⁾の2例、1986年桜田ら¹⁶⁾の報告例2例を合わせても16例と

少ない。本報告では17例の本邦報告を集計し検討を試みた (Table 2)。

年齢や性別に関しては一定した傾向がみられず、年齢は3~75歳と広範囲に分布し、平均52.7歳と、比較的高齢者にみつかると頻度が多い。また、性差についても、♂:♀=9:8ではほとんど差がない。

症状では腹痛14例、発熱7例、黄疸10例であり、急性胆嚢炎あるいは胆管炎をおもわせる所見である。隔壁の部位については、現在までのところ、総胆管-総肝管にみつかり、肝内胆管にみつかるとは報告がない。形態的にはほとんど弁状-索状で幅は1~数mm程度である。ところが、桜田ら¹⁶⁾の報告している症例では、幅1cm、長さ2cmもある隔壁が報告されている。

Table 2 Case reports of septum formation of extra-hepatic bile duct in Japan

No.	Report	Pat. Age	Sex	Symptoms	Location of Septum	Stone	Operative Method	Histology
1	Ohgi	49	M	A, F, J	CBD	(+)	Resection of septum	Chronic cholangitis
2	Hisatugu	58	M	A, F, J	CBD	(+)	Resection of septum	Fibrosis
3	Hisatugu	38	F	A	CBD	(+)	Resection of septum, Papilloplasty	Fibrosis and scar
4	Hisatugu	47	F	A, F, J	CHD	(+)	Resection of septum, Hepatico-jejunostomy	Chronic cholangitis
5	Samejima	3	M	A, J	CBD, CHD	(-)	Resection of septum	Fibrosis with nerve ending
6	Akiyama	59	M	F, J	CBD	(+)	Resection of septum	Fibrosis covered with epithelioid cells
7	Yoshimatu	66	M	F, J	CHD	(+)	Choledocho-duodenostomy	Fibrosis
8	Ishida	75	F	A, F	CHD	(+)	Resection of septum	Fibrosis with nerve tissue
9	Saitou	5	F	A, J	CHD	(-)	Resection of septum, Choledocho-duodenostomy	(-)
10	Iseki	53	F	A, F, J	CBD	(+)	Resection of septum, Papilloplasty	(-)
11	Iseki	49	M	J	CBD	(+)	Biopsy of septum	Mucosal tissue with epithelioid cells
12	Naitou	56	F	A	CBD	(-)	Resection of septum, Choledocho-duodenostomy	Fibrosis
13	Awatu	71	M	A, J	CBD	(+)	Resection of septum	Fibrosis covered with epithelioid cells
14	Awatu	73	M	A,	CBD	(+)	Resection of septum	Fibrosis covered with epithelioid cells
15	Sakurada	72	F	F, J	CBD	(+)	Resection of septum	Fibrosis covered with epithelioid cells
16	Sakurada	56	F	A	CBD	(+)	Resection of septum	Fibrosis covered with epithelioid cells
17	Tashiro	67	M	A	CBD	(+)	Resection of septum	Fibrosis

Pat. : patient, M : male, F : female, A : abdominal pain, F : fever, J : jaundice, CBD : common bile duct, CHD : common hepatic duct.

胆管隔壁の成因が先天性によるものか、後天性によるものであるかはまだ明らかではない。Cornet⁶⁾、Melhem⁷⁾、Fisher⁸⁾らは弁状隔壁と形態の異なるDiaphragm型隔壁症状を報告し、組織学的所見および経過より先天性のものと考えている。一方、Caroli⁴⁾は肝管における輪状狭窄が、組織学的には繊維腺腫性増殖によるものであり、後天性と考えている。また、内藤¹⁴⁾は、隔壁形成が管腔化(Canalization)の異常とする説に反論し、その成因論として、総胆管粘膜と総胆管筋層との発育のずれによるものを推論したが、現在では否定的である。胆管の発生学的な理論¹⁷⁾からして、中実期を経た時期に一部に異常がおこりそれが隔壁として残存し、徐々に延長および肥厚していくことが推論される。また、隔壁が上皮細胞で覆われていない場合があるが、強い炎症が存在すれば上皮細胞が剥脱し、結合組織でおきかわることは十分に考えられる。何ら誘因なく、後天的に発生するとは考えにくく、総胆管内に結石が存在しそれが原因で胆汁のうっ滞あるいは胆管壁の損傷がおこれば可能性はある。しかし、その場合には結石の存在が不可欠で、さらに多発する症例もみられるはずである。以上からすれば隔壁形成は先天的と考えた方が説明しやすい。本症例では、年齢が67歳と高齢で、黄疸などの既往がなく、組織学的にも繊維結合組織の増殖のみで、胆管上皮がみられないが、先天性あるいは後天性であるかどうかの区別は困難である。今後さらに症例が増え検討されていくことが期待される。

隔壁症の治療は、狭窄部位の位置や形態などによって、適応が異なってくるが、種々の危険性を考慮すると、原則的には狭窄部位を積極的に外科的切除することが必要であろう。本症例でも狭窄部位の楔状切除のみで、胆汁の流出はよく、術後経過は良好である。

結 語

きわめてまれな胆管隔壁症例を経験し、その発生学のおよび組織学的な点に関して若干の文献的考察を試み、報告した。

文 献

1) Carter RF, Collins HL: Anomalies of the bile

ducts. Report of two cases with operations and autopsies. *Am J Dis Child* 58: 150—161, 1936

- 2) 大城 武, 藤田 馨: 総胆管隔壁症の一治験例. *沖縄医学会誌* 9: 82—83, 1970
- 3) Henry L, Bochs MD: Anomalies of the gall-bladder and biliary system. *Gastroenterology*, 2nd Ed, Vol. III, W.B. Saunders Company, Philadelphia & London, 1965, p651—665
- 4) Caroli J, Soupault R, Mory G: Contribution a l'etude des retrecissements benins hilaires de la voie biliaire principale. *Sem Hop Paris* 30: 1701—1712, 1954
- 5) Longmire WP: Congenital biliary hypoplasia. *Ann Surg* 159: 335—343, 1964
- 6) Cornet L, Petrucci JM, Morin G: Lithiase biliaire intrahepatique avec diaphragme congenital de l'hepatocholeodoque. *J Chir* 91: 269—272, 1966
- 7) Melhem RE, Nagra K: Congenital diaphragm of the common hepatic duct. *Br J Radiol* 39: 392—394, 1966
- 8) Fisher MM, Chen S, Dekker A: Congenital diaphragm of the common hepatic duct. *Gastroenterology* 54: 605—610, 1968
- 9) 伊関文治, 二川俊二, 伊藤 徹ほか: 総胆管膜様狭窄症の2例. *日消病会誌* 78: 937—942, 1981
- 10) 久次武晴, 志村秀彦, 今回哲二: 総胆管および総肝管隔壁症例について. *外科* 34: 311—316, 1972
- 11) 秋山邦男, 村上哲之, 杉沢利雄ほか: 総胆管隔壁症の1例. *外科* 36: 521—524, 1974
- 12) 吉松 修, 横田 誠, 琢磨照夫ほか: 総肝管隔壁の1例. *日赤医* 27: 146—150, 1974
- 13) 石田和夫, 奥山正治: 肝外胆管隔壁性狭窄の1例. *日消病会誌* 74: 256, 1977
- 14) 内藤寿則, 岡部正之, 植木敏幸ほか: 総胆管隔壁形成の1例. *胃と腸* 16: 1229—1232, 1981
- 15) 栗津隆一, 神坂和明, 前沢秀憲ほか: 添う胆管隔壁形成を示した2例. *腹部画像診断* 4: 355—364, 1984
- 16) 桜田正寿, 神保雅幸, 松本 宏ほか: 総胆管隔壁症の2例. *日消病会誌* 83: 255, 1986
- 17) 山村英樹: 腹部の奇形(肝臓, 胆道), 奇形I, 現代外科学大系, 8A, 中山書店, 東京, 1974, p246—261