

## 胆管癌と膵石を併存した先天性総胆管拡張症の1手術例

奈良県立三室病院外科

高 濟峯 吉川 周作 畑 芳樹 八木 正躬

奈良県立医科大学第1外科

中 島 祥 介 中 野 博 重

症例は35歳，男性，上腹部痛と嘔吐を主訴に来院。総胆管癌および膵石を併存した先天性総胆管拡張症（Alonso-Lej I型）の診断にて，膵頭十二指腸切除を施行された。総胆管は径5.5cmの嚢腫状拡張を示しており，切除標本では，中部胆管に15×15mmの線毛状の腫瘍を認めた。主膵管には4個の膵石が存在し，膵管に胆管が合流するタイプの膵管胆管合流異常を認めた。胆管腫瘍の病理組織検査では，壁深達度は線維筋層までで，転移は認められなかった。

先天性総胆管拡張症に併存した胆道癌は，進行癌が多く予後はきわめて不良である。これらの胆道癌の性質を明らかにするためには，本症例のような早期の症例が，多数蓄積され検討されることが望まれる。

**Key words:** congenital biliary dilatation, bile duct carcinoma, pancreatic stones

### はじめに

先天性総胆管拡張症（以下，CBD）には膵管・胆管合流異常（以下，合流異常）が高率に存在しており，胆道および膵にさまざまな病変を引き起こすことが知られている<sup>1)~3)</sup>。われわれは胆管癌と膵石を併存したCBDに対し膵頭十二指腸切除を施行した1例を経験したので報告する。

### 症 例

症例：35歳，男性。

主訴：上腹部痛，嘔吐。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和56年4月，突然の上腹部痛と嘔吐にて当院内科を受診，急性膵炎の診断にて入院した。内視鏡的逆行性膵胆管造影（以下，ERCP）にて胆嚢総胆管結石を指摘され手術を勧められたが保存的治療にて症状は軽快し，本人の希望によりそのまま退院した。以後無症状であったが，平成2年1月7日，再び上腹部痛と嘔吐が出現，当院内科を受診し入院，精査の結果，総胆管腫瘍と膵石症を伴ったCBDと診断され手術のため当科を紹介された。

入院時現症：体格中等度，栄養良，眼瞼結膜に貧血

なく，眼球結膜に軽度黄染あり。胸部に打聴診上異常なし。腹部は心窩部に圧痛を認め，肝，脾，腫瘤を触知せず。

入院時検査成績：総ビリルビン6.3mg/dl，血清アマラーゼ752IU/lと高値を示し，GOT，GPT，胆道系酵素の上昇がみられた。腫瘍マーカーの上昇は認めなかった（Table 1）。

ERCP所見：総胆管は最大径55mmに拡張し，左右肝管本幹にも拡張を認めた。総肝管に狭窄部位が存在

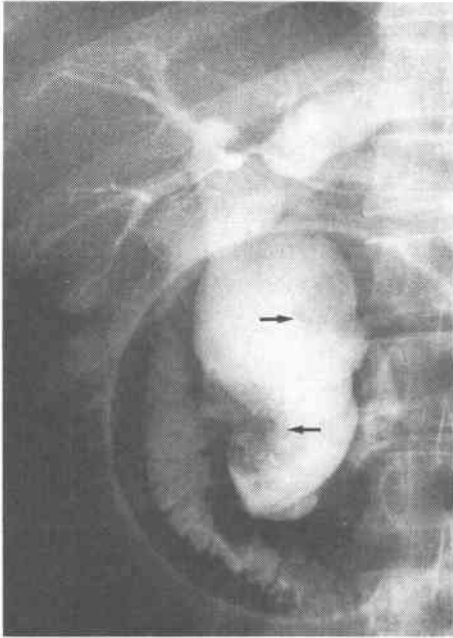
Table 1 Laboratory data

CBC		BUN	7.8 mg/dl
WBC	11000 / $\mu$ l	Cr	0.7 mg/dl
RBC	513×10 <sup>4</sup> / $\mu$ l	Na	137 mEq/l
Hb	14.5 g/dl	K	4.3 mEq/l
Ht	44.2 %	Cl	97 mEq/l
Plt	25.6×10 <sup>4</sup> / $\mu$ l	CRP	3.4 mg/dl
Biochemistry		Tumor markers	
T.Bil	6.3 mg/dl	CEA	1.7 ng/ml
Amylase	752 IU/l	$\alpha$ -FP	1.0 ng/ml
GOT	169 IU/l	CA 19-9	7 U/ml
GPT	329 IU/l	Elastase-1	190 ng/dl
LDH	512 IU/l	DUAPAN-2	25 U/ml
ALP	414 IU/l	Urinalysis	
LAP	222 IU/l	Protein	(-)
$\gamma$ -GTP	712 IU/l	Sugar	(-)
TP	7.35 g/dl	Sediment	Normal

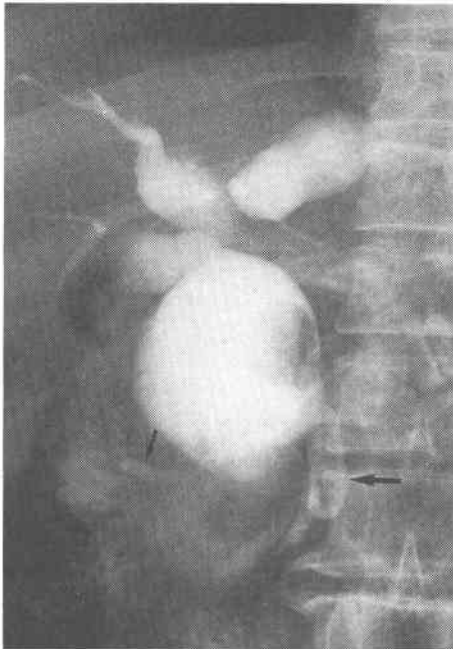
<1991年1月16日受理>別刷請求先：高 濟峯

〒636 奈良県生駒郡三郷町三室1-14-16 奈良県立三室病院外科

**Fig. 1a** ERCP demonstrates cystic dilatation of the common bile duct, and there are two radiolucent areas in it (arrows).



**Fig. 1b** ERCP also shows calcified mass in the main pancreatic duct (large arrow). Patency of the accessory pancreatic duct is observed (small arrow).



しており、中部胆管に20mm大、下部胆管に25mm大の類円形の辺縁不正な陰影欠損を認めた (**Fig. 1a**)。さらに、拡張した主膵管内に膵石を思わせる陰影欠損があり、副膵管が径3mm大に開存していた (**Fig. 1b**)。

腹部 computed tomography (以下、CT) 所見：拡張した総胆管の壁の一部に20mm大の high density mass を認めた (**Fig. 2a**)。別のスライスでは膵頭部の膵実質内に膵石を思わせる石灰化陰影を認めた (**Fig. 2b**)。

以上より総胆管腫瘍と膵石を伴った CBD (Alonso-Lej I 型<sup>4)</sup>、戸谷分類 IVA 型<sup>5)</sup>) と診断し 2 月 14 日、手術を施行した。

術中所見：総肝管に認められた狭窄部より膵内に至る胆管は囊腫状拡張を示し、十二指腸 C ループの開大を認めた。肝転移、腹膜播種、領域リンパ節の腫大は

**Fig. 2a** Abdominal CT scan demonstrates a high density mass in the dilated common bile duct (arrow).

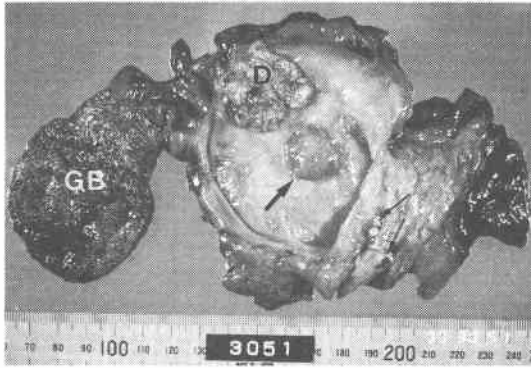


**Fig. 2b** Abdominal CT scan also shows calcification spot in the pancreas head (arrow).

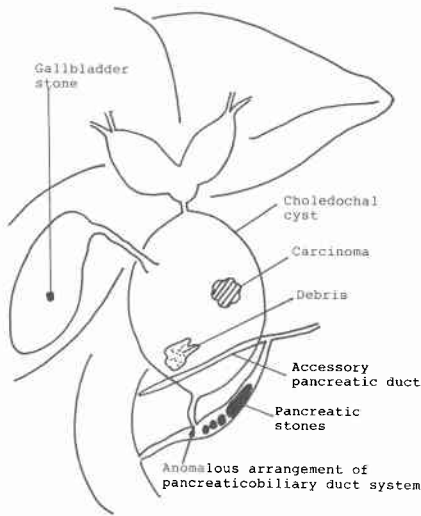


**Fig. 3** Macroscopic findings of the resected specimen demonstrates a villous tumor in the middle of the common bile duct (thick arrow). Thin arrows point the pancreatic stones in the main pancreatic duct.

D : debris in the common bile duct. GB : gallbladder.



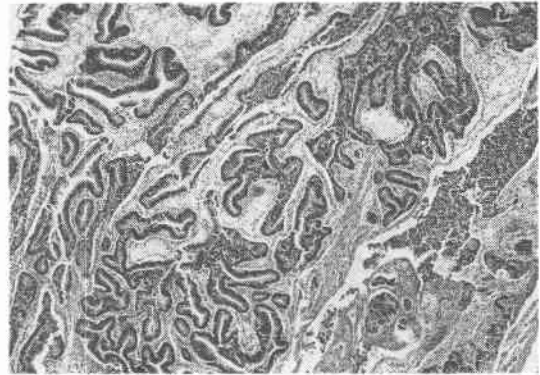
**Fig. 4** Schema of the lesions of this case.



認めなかった。手術は胆管を、総肝管の狭窄部を切除側につけるようにして左右肝管の分岐部にて切離し、臍頭十二指腸切除を施行した。胆管の断端を術中迅速病理検査に提出し、腫瘍の浸潤のないことを確認した。

切除標本肉眼所見：嚢腫内に15×15×5mmの柔らかい線毛状の腫瘍を認めた。ERCPで下部胆管にみられた陰影欠損の部位には腫瘍はなく、嚢腫内に存在していた黄色のdebrisが腫瘍のように写っていたものと思われた。主膵管内に20×7mm、径5mm、径3mm、

**Fig. 5** Histological findings of the common bile duct tumor (×40, HE) shows the papillary adenocarcinoma.



径2mmの4つの膵石を認めた(Fig. 3)。また総胆管末端は急激に狭小化し、径2mmの太さとなって十二指腸壁外で主膵管に合流しており、胆管が膵管に合流するタイプの合流異常と判明した。本症例でみられた病変を図示する(Fig. 4)。CBD、合流異常、総胆管腫瘍、膵石のほか、径5mm大の胆嚢結石、副膵管の開存が認められた。

切除標本病理組織所見：腫瘍は胆管壁より線毛状に発育しており、弱拡大像にて乳頭状腺癌の像を呈していた(Fig. 5)。総胆管内にみられた黄色のdebrisも腫瘍組織であった。膵実質は繊維化が進んでおり慢性膵炎の像を示していた。胆道癌取扱い規約<sup>6)</sup>による病理組織所見はpap, int, INFβ, ly<sub>0</sub>, v<sub>0</sub>, pn<sub>0</sub>, patBm, fm, hin<sub>0</sub>, gin<sub>0</sub>, panc<sub>0</sub>, d<sub>0</sub>, vs<sub>0</sub>, hw<sub>0</sub>, dw<sub>0</sub>, ew<sub>0</sub>, n<sub>1-3</sub>(-)であった。

胆汁検査：アミラーゼ57,561IU/l, リパーゼ15,473 U/l, carbohydrate 19.9 (CA19-9) 10,000U/ml以上と高値を示した。

結石分析：膵石はすべて炭酸カルシウム98%以上であり、胆石はコレステロールが主成分であった。

術後経過は良好で、平成2年4月18日、軽快退院した。

**考 察**

CBDは、その成因として合流異常の関与が強調されており、胆石症、胆道癌、胆道穿孔などの胆道疾患のみならず、急性あるいは慢性膵炎を併存することが知られている<sup>11-3)</sup>。

特に胆道癌の発生頻度は戸谷ら<sup>7)</sup>によれば、胆管癌10.1%、胆嚢癌7.0%と一般胆道癌の発生率に比べ著し

く高率である。本症における癌発生には膵液の胆道内逆流が関与し、膵液中のトリプシン、ホスホリパーゼA2などの膵酵素が胆汁中酵素によって活性化して胆汁中のレンチンを分解し、発癌性のあるリゾレンチンを産生するといわれている<sup>7)8)</sup>。さらに船曳ら<sup>2)</sup>は本症の胆汁中においてタウロデオキシコール酸、リトコール酸、遊離型デオキシコール酸などの組織障害作用、発癌促進作用をもつといわれる2次胆汁酸が増加している事実を指摘している。

本症に併存した胆道癌はほとんどが進行癌であり、戸谷ら<sup>7)</sup>の328例の集計では根治手術が可能であった症例は胆管癌で48.2%、胆嚢癌で61.7%にすぎない。5年以上の長期生存例はわずか6例で、これらはすべて胆嚢癌であり、胆管癌の予後はほとんど絶望的である。自験例の胆管癌は壁進達度はfmで、転移も認められず、比較的早期の症例と思われた。橋村ら<sup>9)</sup>は、CBDに併存した進達度fmまでの胆管癌の報告例を13例集計している。このような早期の症例はまれであり、CBDに併存した胆管癌の予後が一般胆管癌に比べてもさらに不良であるのは、進行癌症例が多いためなのか、それとも早期に手術したとしてもやはり予後不良であるのかを知るうえで、今後本症例のような比較的早期といえる症例の蓄積と予後の追跡が望まれる。

一方、本症における膵石の発生頻度は川満ら<sup>10)</sup>の集計によれば12.8%である。膵石の発生には合流異常による感染胆汁の膵管内逆流が関与しており、合流形態別にみると、本症例のように胆管が膵管に合流するタイプに発生頻度が高いといわれている<sup>11)</sup>。本症例は胆管癌と膵石が同時に存在しており、その発生機序から考えて、胆管内と膵管内で胆汁と膵液の相互逆流が起こっていたことが示唆された。川満ら<sup>10)</sup>は、CBDあるいは合流異常に膵石を併存した症例36例を集計しているが、胆道癌併存例は胆管癌、胆嚢癌ともに認められない。われわれの検索した範囲では、本邦報告例のうち本症に胆道癌と膵石が同時に存在していたのは、大友ら<sup>12)</sup>の報告した胆管癌と膵石を併存した1例のみであった。

CBD、合流異常に対する手術術式は、胆道癌などの併存疾患のない症例では肝外胆道切除、胆道再建が選択される。膵石が併存していても膵管のドレナージシステムが保たれている症例では同手術で十分であるが、膵管狭窄や複雑な膵管奇形を認める場合、膵頭十二指腸切除の適応である<sup>3)</sup>。本症例では総胆管癌を併

存していたこと、副膵管が太く開存する膵管奇形を有し、主膵管が膵石で閉塞していたことから膵頭十二指腸切除を選択した。

CBD、合流異常の症例は、高い胆道癌発生率を考え併存疾患がなく症状が軽微であったとしても、発見された時点で肝外胆管切除、胆道再建などの外科的処置を行うべきであると考えられる。本症例は比較的早期であり、長期生存も期待できると思われた。

本症例の診療における反省点は、昭和56年の膵炎発症時に正確な診断が下せなかったことである。このとき施行されたERCPでは総胆管の嚢腫状拡張は認められていなかったが、アルコール多飲歴のない若年者の膵炎として、注意深く観察しておれば合流異常は指摘しえたと思われ、常日頃から合流異常の発見に努めることの大切さを認識させられた症例であった。

#### 文 献

- 1) 永川宅和, 太田哲生, 竹下八洲男ほか: 膵胆管合流異常と胆道病変. 胃と腸 20: 361-368, 1985
- 2) 船曳孝彦, 杉上勝美, 落合正宏ほか: 膵胆管合流異常における胆汁中胆汁酸分画の検討. 胆道 1: 77-83, 1987
- 3) 羽生富士夫, 今泉俊秀, 中村光司ほか: 膵・胆管合流異常の手術. 胆と膵 9: 1205-1213, 1988
- 4) Alonso -Lej F, Rever WB Jr, Pessagno DJ: Congenital choledochal cyst with a report of two and analysis of 94 cases. Int Abstr Surg 108: 1-30, 1959
- 5) 戸谷拓二, 岡崎邦雄, 田淵勝輔ほか: 先天性胆道拡張症, その分類と手術方法および癌発生例について. 手術 29: 875-880, 1975
- 6) 日本胆道外科研究会編: 胆道癌取り扱い規約, 第2版. 金原出版, 東京, 1986
- 7) 古味信彦編: 消化器外科セミナー27. 膵胆管合流異常. ヘルス出版, 東京, 1987, p129-151
- 8) 加藤哲夫, 松田 淳, 萱場広之ほか: 膵胆管合流異常の病態. 胆道 1: 377-383, 1987
- 9) 橋村直隆, 松本道男, 鈴木不仁彦ほか: 先天性胆道拡張症に合併した早期胆管癌の1例. 胆と膵 9: 857-863, 1988
- 10) 川満富裕, 長島金二, 土屋博之ほか: 膵胆管合流異常と膵石. 小児外科 17: 1351-1360, 1985
- 11) 松山秀樹, 羽生富士夫, 中村光司ほか: 陽性膵石を合併した膵胆管合流異常・先天性総胆管拡張症の1例. 膵臓 4: 105-112, 1989
- 12) 大友 邦, 荒木 力, 板井悠二ほか: 胆管癌を合併した choledochal cyst の1例. 臨放線 28: 895-897, 1983

**A Case of Congenital Biliary Dilatation Associated with Bile  
Duct Carcinoma and Pancreatic Stones**

Saiho Ko, Syusaku Yoshikawa, Yoshiki Hata, Masami Yagi,  
Yoshiyuki Nakajima\* and Hiroshige Nakano\*  
Department of Surgery, Nara Prefectural Mimuro Hospital  
\*First Department of Surgery, Nara Medical University

A 35-year-old man was admitted to our hospital complaining of upper abdominal pain and nausea. His condition was diagnosed as congenital biliary dilatation (Alonso-Lej I type) associated with a common bile duct tumor and pancreatic stones, and pancreaticoduodenectomy was performed. The common bile duct showed cystic dilation (5.5 cm in diameter). A villous tumor (15 × 15 × 5 mm) in the dilated common bile duct, and 4 pancreatic stones in the main pancreatic duct were found. An anomalous arrangement of the pancreaticobiliary duct system was observed. Histological examination of the tumor revealed a papillary adenocarcinoma confined to the fibromuscular layer with no metastasis. Biliary carcinoma in congenital biliary dilatation is frequently detected only in the advanced stage, and its prognosis is poor. Many cases of early carcinoma such as this case should be studied to clarify the characteristics of carcinoma in congenital biliary dilatation.

**Reprint requests:** Saiho Ko Department of Surgery, Nara Prefectural Mimuro Hospital  
1-14-16 Mimuro, Sango-cho, Ikoma-gun, Nara, 636 JAPAN

---