## 黄疸で発症し総胆管に異所性膵組織と結石を認めた1例

東京慈恵会医科大学第2外科

柳澤 暁 横田 徳靖 小川龍之介 田中 純木崎 馨 高橋 恒夫 青木 照明

症例は84歳の女性,5年前に胆嚢総胆管結石の診断にて,胆嚢摘出,総胆管切開,切石,Tチューブドレナージを施行した。術後の胆道鏡にて下部胆管に隆起性病変を認めるも,生検にて悪性所見を認めなかったため経過観察としていた。今回,上腹部痛,黄疸にて入院,エコー,CT 検査にて総胆管結石の再発による閉塞性黄疸と診断し,緊急手術を施行した。総胆管には,ビリルビン結石とともに,1.3×1.0cm の柔らかい腫瘤を認め,摘出標本の組織学的検索にて,Heinrich の分類による I 型の異所性 医組織と診断された

総胆管にみられる異所性膵組織は非常にまれであり、著者らが検索しえたかぎりでは本症例を含め 8 例の報告のみで、いずれの症例も女性であり、総胆管の拡張をともなっている。総胆管の異所性膵組織は、胆汁うっ滞の原因となり、総胆管結石、胆管炎、胆嚢炎などを引き起こすと考えられるため、切除すべきである。

Key words: heterotopic pancreas, common bile duct, choledocholithiasis

#### はじめに

消化管などにみられる異所性膵組織は、手術時あるいは剖検時に偶然発見されることが多く、まれな疾患ではないが、胆道系に発生した例は少ない。胆囊に発生したという報告は比較的多い<sup>1)2)</sup>が、総胆管に発生したという報告はきわめてまれであり、著者らが検索しえたかぎりでは自験例を含め8例の報告のみである<sup>3)~8)</sup>

最近、われわれは総胆管結石による閉塞性黄疸の診断で手術を施行し、総胆管内にビリルビン結石とともに異所性膵組織の認められた1例を経験したので若干の文献的考察をくわえて報告する。

### 症 例

患者:82歳、女性

主訴:上腹部痛,嘔気,嘔吐 家族歴:特記すべきことはない。

既往歴:5年前,胆嚢総胆管結石にて,胆嚢摘出, 総胆管切開,切石,Tチューブドレナージを施行された.

現病歴:1990年夏ごろより上腹部痛が時々あるも自宅にて様子をみていた。1991年3月20日夜になり上腹

<1992年11月11日受理>別刷請求先:柳澤 暁 〒105 港区西新橋 3 - 25 - 8 東京慈恵会医科大学 第 2 外科 部痛が強くなり、嘔気も出現し、来院した。

入院時現症:身長138cm, 体重58.0kg, 上腹部から 右季肋部にかけて自発痛と著明な圧痛と腹膜刺激症状 を認め、眼球結膜に黄染を認めた。

入院時血液検査所見:総ビリルビンは6.6mg/dlと上昇,軽度の肝機能障害と胆道系酵素の上昇を認めた。 白血球は17,700と増加し, CRP は19.2mg/dlと上昇し

Table 1 Laboratory data on admission

		•	
WBC	17,700 /mm³	Elastase-1	1,200 ng/ml
RBC	$429\times10^4\ /\mathrm{mm^3}$	TP	$5.5\mathrm{g/dl}$
Hb	$12.8\mathrm{g/dl}$	Alb	$3.2\mathrm{g/dl}$
Ht	38.1 %	UN	$13\mathrm{mg/dl}$
P1	$1.3\times10^4~/\mathrm{mm}^3$	Cr	$1.0\mathrm{mg/dl}$
GOT	$70  \mathrm{mU/ml}$	Cl	$103  \mathrm{mEq/l}$
GPT	$56  \mathrm{mU/ml}$	Na	137  mEq/l
LDH	$279\mathrm{mU/ml}$	K	$2.8\mathrm{mEq/l}$
TBi	$6.6\mathrm{mg/dl}$	CRP	$19.2\mathrm{mg/dl}$
DBi	$3.3\mathrm{mg/dl}$	PT	>100 %
ALP	5.2 BLu/l	APTT	31.8 sec.
LAP	461 GRu	Fib	524 mg/dl
$\gamma$ GTP	$111\mathrm{mU/ml}$	TT	75 %
AMY	47 U	НРТ	90 %
AFP	5 ng/ml	ATIII	68 %
CEA	$7.0\mathrm{ng/ml}$	FDP	$8  \mu \text{g/ml}$
CA19-9	110 U/ml		

ており、炎症所見が強いと考えられた。また、腫瘍マーカーの軽度上昇を認めた(Table 1)

入院時 CT 検査所見: 著明に拡張した総胆管の中に 結石陰影を認めたが、腫瘤陰影は認めなかった (Fig. 1). また、エコー検査では、消化管ガスのため、総胆 管の拡張しかとらえることはできなかった.

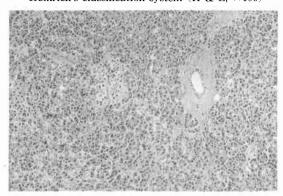
総胆管結石による閉塞性黄疸と診断し、保存的治療 を行うも黄疸,炎症所見が軽減せず,1991年3月23日, 緊急手術を施行した。

手術所見:開腹し,前回手術による癒着を剝離し,総胆管を切開,結石鉗子により $2.5 \times 1.5$ cm のビリルビン結石を切石,さらに $1.3 \times 1.0$ cm の柔らかい腫瘤を採取した。T チューブドレナージを施行し,閉腹した。

**Fig. 1** CT scan of the abdomen shows choledocholithiasis, but tumor lesion is not detected in the common bile duct



Fig. 2 Histological findings of the resected tumor showing heterotopic pancreas of type I in Heinrich's classification system (H & E,  $\times 100$ )



病理組織学的所見:採取された腫瘤は正常の膵組織であり、導管、ランゲルハンス島を認め、腫瘍性変化、炎症所見はなく、Heinrichの分類による I 型の異所性膵組織と診断した(Fig. 2)

術後胆道鏡所見:総胆管下部に壁の不整を認めたが 狭窄所見は認めず,異所性膵組織の切除断端と考えら れた(Fig. 3)。その部位の生検では炎症細胞浸潤を認 める胆管粘膜の所見であり,膵組織の残存は認められ なかった。

術後胆道造影所見:T チューブからの胆道造影では、総胆管の拡張を認めるも、結石陰影、狭窄像はなく、現在外来 follow up 中である (Fig. 4).

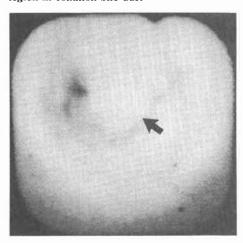
Fig. 3 Choledochoscope after lithotomy and tumor resection findings irregulality of common bile duct wall, but not stenosis



Fig. 4 Cholangiogram showing no stone and no stenosis



Fig. 5 Choledochoscope findings at 1986 elvated legion in common bile duct



1986年,胆嚢摘出, Tチューブドレナージを施行した際の胆道鏡所見では,総胆管の内腔に突出する腫瘤性病変を認めるも(Fig. 5),生検による組織学的診断は正常の胆管壁であったため,78歳という年齢を考慮し経過観察とした。放置していた異所性膵組織による胆汁うっ滞が結石再発の原因となっていたと考えられた。

#### 考 察

異所性膵組織は、主臓器の正常な解剖学的部位とは離れていて連続性をもっていない膵組織のことである。発生頻度は剖検例の1~2%に、また上腹部手術の0.2%にみられる。その多くは十二指腸、胃、空腸、メッケル憩室や回腸に存在するが、まれに大網、肝臓、脾臓、胆嚢、総胆管、ファーター乳頭などに認められることがある。

異所性膵組織はいかなる年齢にも発見されており、 50~60歳台に最も多くみられるが、これはその年代に 剖検や手術が多いことが原因していると考えられる.

組織学的には Heinrich の分類が最も多く使われ、3型に分類され、I型は腺房細胞、ランゲルハンス島、導管よりなり正常の膵組織と変わりのないもの、II型は腺房細胞と導管よりなり、III型は導管とその他平滑筋線維よりなるものである<sup>9)</sup>。

一般に症状は、大きさ、部位により異なるが、大部分は無症状である。しかし、悪心、嘔吐、体重減少、消化管出血などがみられることがあり、胆道系とくに胆嚢壁に存在するものではほとんどの症例が右季肋部あるいは上腹部に疼痛を訴え、背部放散痛や黄疸などの胆石症、胆嚢炎の症状に類似している。異所性膵組織は、粘膜下あるいは漿膜下に存在することが多いため、術前に生検により組織学的診断をつけることは難しく、また大きさも5mm以下のものが多いため肉眼的にも発見は困難である。

本症例は、黄疸を契機として発見された総胆管に発 生した異所性膵組織であり、組織学的には正常膵組織 そのものであり、HeinrichのI型であり、総胆管結石 をともなっていた。結石は異所性膵組織より肝臓側に 存在しており、5年間の胆汁うっ滞により結石が形成 されたと考えられた. 総胆管にみられる異所性膵組織 は非常にまれであり、われわれの検索しえたかぎりで は自験例を含め本邦で4例,欧米の報告を合わせて8 例の報告のみである (Table 2). 8 例のうち, 1 例の みが Heinrich の II 型で、その他はすべて I 型であっ た. 胃壁内にある異所性膵組織は Heinrich の I 型が 多く, 胆嚢壁内のものでは I 型, II 型はそれぞれ約3 分の1程度であった。総胆管の異所性膵組織は、総胆 管嚢腫にて嚢腫切除により発見された例や、黄疸の精 査,加療後に偶然発見された例などである. 8例すべ ての症例が女性であり、総胆管の拡張をともなってお り、胆汁うっ滞による拡張、結石の発生の原因と考え

Table 2 Reported cases of heterotopic pancreas in the common bile duct

author	year	age	sex	size(mm)	dilatation of the common bile duct	operative method
1 Barbosa	1946	61	9	?	<sup>2</sup> +	tumor resection
2 Weber	1968	46	우	8×6	+	resection of common bile duct
3 Sabini	1970	33	우	10	+	resection of common bile duct
4 Oota	1984	13	우	4×2	+	resection of common bile duct
5 Oota	1985	68	우	6×3	+	resection of common bile duct
6 Itoh	1989	35	우	?	+	resection of common bile duct
7 Tsunoda	1990	77	우	4×3	+	resection of common bile duct
8 this case	1992	82	우	13×10	+	tumor resection

られた。また、胆囊内の異所性膵組織の報告をみると、性差は認めず、併存病変として胆嚢内結石を51.9%に認められた。これは、胆嚢胆石症の診断にて偶然に術後にみつかった症例が多いことと、胆嚢内の胆汁うっ滞により症状の出た症例が多いものと考えられた。総胆管内異所性膵組織の症例の術式は、総胆管切除が5例と、経十二指腸的腫瘤切除、経 T-チューブ瘻孔的腫瘤切除、がそれぞれ1例と、自験例の総胆管切開腫瘤切除であった。いずれの症例も、術後摘出標本の組織学的検索にて膵組織を認め、異所性膵組織の診断がついた症例である。また、組織学的に悪性所見を認めたという報告はなく、予後は良好である。

総胆管に発生する異所性膵組織は、胆汁のうっ滞により黄疸、胆囊内結石、総胆管結石、胆嚢炎、胆管炎などを引き起こす原因となり得るため、切除が必要と考えられるが、腺腫、炎症性肉芽腫との鑑別は困難であり、その手術適応を決定するには、上記のような随伴する症状によると考えられた。

#### 1 文 献

- 1) 石井芳正, 大森勝寿, 鈴木正人ほか: 異所性消化管 組織による腫瘤性病変ー本邦及び欧米報告例の文 献的考察-. 日外会誌 86:868-876, 1985
- 2) 高野まさる, 嶋野松朗, 加藤裕昭ほか: 胆嚢にみら

- れた異所性膵の1例. 臨外 41:1349-1353,1986
- 3) Barbosa JJD, Dockerty MB, Waugh JM: Pancreatic heterotopia. Surg Gynecol Obstet 82: 527-542, 1946
- Weber CM, Zito PF, Becker SM: Heterotopic pancreas: An unusual case of obstruction of the common bile duct. Am J Gastroenterol 49: 153-159, 1968
- 5) Sabini AM, Baden JP, Norman JD et al: Heterotopic pancreatic tissue in the common bile duct or ampulla of vater. Am Surg 36: 662-666, 1970
- 6) 太田哲生, 小西孝司, 竹下八州男ほか: 先天性総胆 管嚢胞壁にみられた異所性膵組織の1例。臨外 39:1775-1778, 1984
- 7) 太田哲生, 永川宅和, 秋山高儀ほか:総胆管壁に異所性膵組織を認めた胆嚢癌の1例. 胆と膵 6:389-393,1985
- 8) Tsunoda T, Eto T, Yamada M et al: Heterotopic Pancreas: A rare cause of bile duct dilatation—report of a case and review of the literature—. Jpn J Surg 20: 217—220, 1990
- Heinrich H: Ein Beitrag zur Histologie des sogen. Akzessorischen Pankreas. Virchows Arch (A) 198: 392-401, 1909

# A Case of Heterotopic Pancreas and a Stone in the Common Bile Duct with Obstructive Jaundice

Satoru Yanagisawa, Tokuyasu Yokota, Ryunosuke Ogawa, Jun Tanaka, Kaoru Mizusaki,
Tsuneo Takahashi and Teruaki Aoki
Department of Surgery (II), Jikei University School of Medicine

An 84-year-old woman who had cholecystectomy, choledochotomy, lithotomy and T-tube drainage for cholecystocholedocholithiasis 5 years earlier, presented with upper abdominal pain and jaundice. She was hospitalized for recurrent choledocholithiasis. An emergency operation was performed and a heterotopic pancreas and a stone were found in the common bile duct. Heterotopic pancreas of the common bile duct is said to be very rare, only 7 cases having been reported. All of the patients were women and were found to have a dilated common bile duct. Biliary stasis by the tumor caused the choledocholithiasis, cholangitis and cholecystitis. Resection of the tumor is thought to be the only reasonable treatment.

Reprint requests: Satoru Yanagisawa Department of Surgery (II), Jikei University School of Medicine 3-25-8 Nishishinbashi, Minato-ku, Tokyo, 105 JAPAN