

胆嚢仮性動脈瘤の1例

国家公務員等共済組合連合会三宿病院消化器外科

松葉 芳郎 鈴木 正敏 小野 由雄

胆道出血(Hemobilia)を呈する疾患のなかでも胆嚢由来のものはまれである。今回我々は、胆嚢頸部嵌頓結石による胆嚢潰瘍で生じた Cystic artery pseudoaneurysm を経験したので、文献的考察を加え報告した。患者は72歳の女性。腹痛、嘔吐を主訴に近医受診。USにて胆嚢頸部嵌頓胆石症と診断され、当院緊急入院となった。経過中に吐血、下血はなかった。入院時検査では肝胆道系酵素の軽度上昇とビリルビンの上昇を認めた。入院後のUSにて胆嚢頸部に中心に拍動を伴う腫瘤を描出、CT、Angiographyにて胆嚢動脈瘤の診断を得た。入院後2日目に開腹胆嚢摘除術、総胆管切開 T-tube 外瘻術を施行した。摘出胆嚢の頸部には全層性潰瘍が存在し、潰瘍底には露出した胆嚢動脈と pseudoaneurysm を確認した。

Key words: cystic artery pseudoaneurysm, gallbladder ulcer, hemobilia

はじめに

胆道出血(Hemobilia)を呈する疾患のなかでも胆嚢由来のものはまれである^{1)~3)}。今回我々は、胆嚢仮性動脈瘤による胆道出血の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

患者：72歳女性

既往歴：1992年、脳梗塞、高血圧

現病歴：約10年前から心窩部痛を時々感じていた。

3日前から腹痛出現、嘔吐を伴うようになり近医受診。腹部超音波検査(Ultrasonography; 以下、USと略記)にて胆嚢頸部嵌頓胆石症と診断され、当院緊急入院となった。入院までの経過中に吐血、下血はなかつ

Fig. 1 a) Abdominal ultrasonography reveals a tumor-like lesion about 3cm in diameter with a central cystic pattern area at the neck of the gallbladder. b) Color doppler ultrasonography shows flow signals in the cystic pattern area.



Table 1 Laboratory data on admission

GOT	127 IU/L	TP	6.9 g/dl
GPT	241 IU/L	Alb	2.0 g/dl
LDH	501 IU/L	ChE	0.60 dpH
AP	361 IU/L	BUN	20.9 mg/dl
γ GTP	355 IU/L	Cre	0.2 mg/dl
Bil	5.2 mg/dl	Na	139 mEq/L
AMY	33 IU/L	K	3.9 mEq/L
CRP	1.7 mg/dl	Hct	45.9 %
Hb	14.3 g/dl	Plt	18.6 10^4 /mm ³
RBC	510 10^4 /mm ³	WBC	7,600 mm ³

<1996年2月14日受理>別刷請求先：松葉 芳郎
〒153 目黒区上目黒5-33-12 国家公務員等共済
組合連合会三宿病院消化器外科

Fig. 2 Abdominal CT scan demonstrates a round mass at the gallbladder neck and a severe enhanced area in it. Density of the contents of the gallbladder and dilated common bile duct are higher than normal.

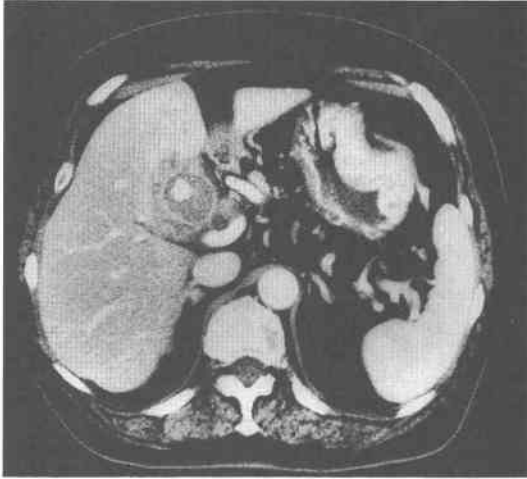
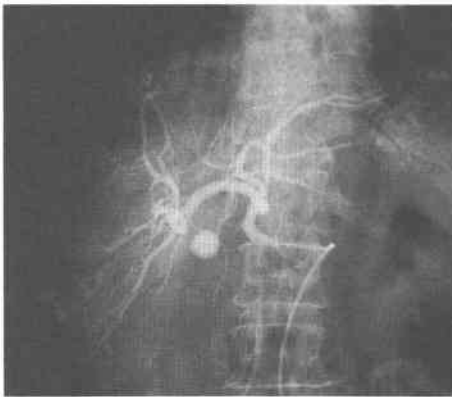


Fig. 3 Proper hepatic arteriogram demonstrating a cystic artery aneurysm.



た。

入院時現症：身長155.3cm，体重55.3kg，体温35.8°C，腸管の蠕動低下，腹部膨満，右季肋部の圧痛，軽度黄疸を認めた。

血液検査所見：ビリルビン，肝胆道系酵素の上昇と軽度炎症所見を認めた (Table 1)。

腹部単純 X 線所見：第一腰椎右側に3×2cm 大の楕円形の結石を疑う陰影1個を認めた。

US：胆石は胆嚢底部に存在していた。胆嚢頸部には直径約3cm 大の球形の腫瘤様病変を認め，その中央に

Fig. 4 Macroscopic findings of the resected gallbladder. A large stone (3×2cm) and round hematoma at the neck.

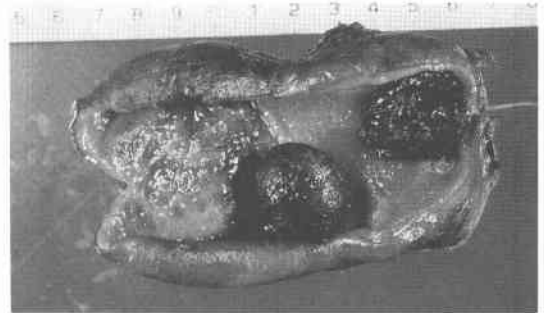
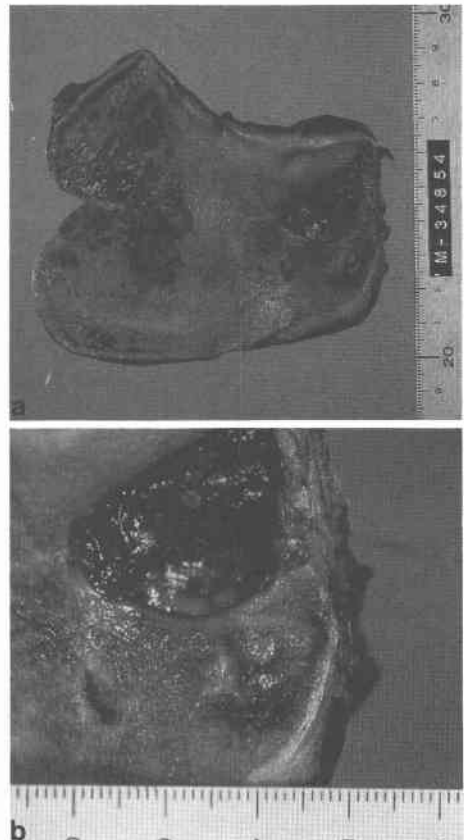


Fig. 5 a) Gallbladder ulcer is observed under the hematoma of the neck. b) Eroded cystic artery at the bottom of the ulcer.



直径1cm 大の嚢胞様部分があり，拍動を伴っていた (Fig. 1a)。Colour Doppler 法でこの部分にカラー表示が得られ，動脈性の血流と考えられた (Fig. 1b)。

考 察

また胆嚢内容は、通常の胆汁よりも hyperechoic であった。

腹部 CT 検査：胆嚢頸部に直径約3cm 大の腫瘤様病変が存在し、その中心に著明に enhance される 1 cm 大の嚢胞様部分がある。また、胆嚢、および拡張した総胆管内容の density の上昇を認めた (Fig. 2)。

固有肝動脈造影：胆嚢動脈の胆嚢頸部に相当する部分に円形の著明な濃染像を認め、ビデオの検討では動脈瘤内部に渦をまいて流入する所見も認められた (Fig. 3)。入院後、間欠性の出血が疑われ、胆嚢動脈瘤破裂の診断にて、緊急手術とした。

手術所見：上腹部正中切開で開腹。胆嚢は緊満腫大し、頸部と肝十二指腸間膜が強固に癒着していた。胆嚢摘除、術中胆道造影を施行し血腫の残存無きことを確認したが、右肝管の損傷あり。この部分を端々吻合し、総胆管切開し T-tube 挿入、肝臓側脚を吻合部のステントとした。4週間後に T-tube 留置のまま退院し、外来にて抜去した。

摘出標本：切除胆嚢は10.6×9.4cm 大で、胆嚢内部には2×3cm 大の結石(混成石) 1個、血性胆汁、凝血塊が充満し、頸部には直径3cm 大の球形の血腫が嵌まり込んでいた (Fig. 4)。この血腫を除去すると、2.4×1.8cm 大の全層性の深い胆嚢潰瘍が存在し、潰瘍底に穿破した胆嚢動脈を確認できた (Fig. 5)。胆嚢動脈には動脈硬化、動脈内膜炎などの所見はなかった。また、血腫の断面は嚢胞状で、内部に血液が貯留していた。病理組織検査では、血腫の嚢胞壁に動脈壁成分は含まれていなかった (Fig. 6)。

肝・胆道系から消化管に出血する病態：胆道出血 (Hemobilia) は1948年に Sandblom が提唱し、1972年に欧米545例のうちの記載の完全な355例を集計報告している¹⁴⁾。その後、経皮経肝胆道造影、経皮経肝胆道ドレナージ、針肝生検、胆道内ステントなどの診断、治療手技の普及に伴い医原性胆道出血が増加している。Yoshida ら²⁾は1981年～1985年までの胆道出血101例に自験例2例を加えた103例と、Sandblom らの355例とを比較検討している。これによれば、医原性疾患は355例中59例 (16.6%) から103例中42例 (40.8%) に増加しているのに対して、胆嚢出血による hemobilia は355例中82例 (23.1%) から103例中9例 (8.7%) に減少しており、このうち胆石によるものも355例中41例 (11.5%) から103例中6例 (5.8%) にその割合を減じている。本邦における Hemobilia は、泉田ら³⁾が1983年1月までの148例をまとめている。このうち、胆嚢が原因のものは33例 (26.2%) であり、胆

Fig. 6 The cut surface of the hematoma shows fibrous cavity in it.

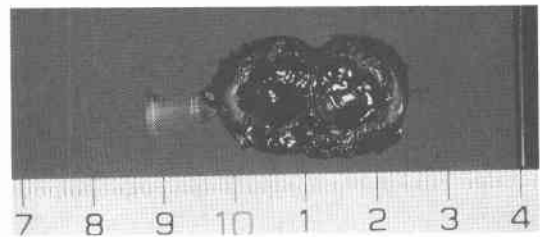


Table 2 Classification of the cystic artery pseudoaneurysm

Etiology	Case
I acute cholecystitis	Hakami ¹⁰⁾ Barba ⁷⁾ Smague ⁸⁾ Reddy ¹¹⁾ Rhee ¹²⁾ Wu ⁶⁾ Strickland ¹⁷⁾ Read ⁹⁾ Devin ¹⁸⁾ Present case
II periarteritis nodosa	Czerniak ¹³⁾
III heterotopic gastric mucosa	Adam ¹⁴⁾
IV post-cholecystectomy	
1) open	Clements ¹⁵⁾
2) laparoscopic	Zilberstein ¹⁶⁾
Location	Case
① intra-cystic type	Barba ⁷⁾ Smague ⁸⁾ Read ⁹⁾ Present case
② extra-cystic type	Hakami ¹⁰⁾ Reddy ¹¹⁾ Adam ¹⁴⁾ Rhee ¹²⁾ Wu ⁶⁾

嚢潰瘍は4例(2.7%)、結石は9例(6.1%)であった。また、坂本ら⁵⁾は本邦胆嚢出血61例(学会発表も含む)を集計し、その原因を①炎症、②潰瘍、③結石、④胆嚢壁の動脈硬化性病変、⑤鈍的外傷、⑥癌、⑦不明に分類している。このうち、潰瘍を原因とするものは9例(14.8%)であった。今回、我々が1990年から1995年9月までのMEDLINEで検索しえたcystic artery pseudoaneurysmの報告は、画像診断のみの例も含めて14例であった^{6)~18)}。内訳は急性胆嚢胆嚢炎によるものが10例、胆嚢摘除術後が2例、結節性動脈周囲炎が1例、胆嚢異所性胃粘膜が原因となったものが1例であった。急性胆嚢胆嚢炎の頻度が高いにもかかわらず、本疾患のまれな理由としてWuら⁹⁾は胆嚢の炎症過程の早期に、胆嚢動脈が血栓により閉塞してしまうことを挙げている。胆嚢頸部嵌頓結石が高度の胆嚢炎を招き、炎症進行に伴い、動脈の弾性繊維、筋層、漿膜のびらんが生じ、pseudoaneurysmを形成するとしている。我々はpseudoaneurysmの形成機序には、炎症による動脈の変化と、嵌頓結石による胆嚢潰瘍の形成との2つの要素が関与していると考え、胆嚢潰瘍による動脈破綻の場合はpseudoaneurysmは、胆嚢内腔に形成され、開腹所見では指摘が困難である(intra-cystic type)^{7)~9)}。一方、炎症による動脈の変化が進行し、動脈瘤を形成したのちに胆嚢あるいは胆管に穿破した場合は、pseudoaneurysmは胆嚢の外に存在し開腹所見にて存在を確認できる(extra-cystic type)^{6)10)~13)}。つまり、胆嚢を開いてはじめて動脈瘤が確認できるintra-cystic typeと、開腹所見にて胆嚢の外に動脈瘤を確認できるextra-cystic typeでは、その形成過程における病態が異なると考えられ、以上のような報告例の検討より、我々は検索しえた症例を分類した(Table 2)。今後の症例の集積によりさらに病理組織学的にもcystic artery pseudoaneurysmの形成機序が解明されると思われる。

治療については、pseudoaneurysmと胆嚢結石の除去が根本的治療であり、外科手術が望ましい。また、胆道の血腫遺残の有無を確認することが大切であり、まず術中胆道造影を施行し、血腫の遺残が疑われる場合は、胆嚢管からの洗浄や総胆管切開を加えた血腫の除去、術中胆道鏡検査も必要と考える。報告症例では、外科的治療が行われた13例のうち、7例は胆嚢摘出術のみ、6例は胆道ドレナージが付加されている。凝血塊による結石形成や胆汁の通過障害などの合併症の可能性に対して、より安全を期するためには総胆管切開

T-tube外瘻術を施行すべきと思われる。

なお、本文の要旨は第24回日本腹部救急医学会総会、第23回日本消化器画像診断研究会にて発表した。)。

文 献

- 1) Sandblom P: Pathology, Diagnosis, Treatment. Edited by Charse CT. Hemobilia (biliary tract hemorrhage). Thomas publisher, Springfield, 1972, p5-51
- 2) Yoshida J, Donahue PE, Nyhus LM: Hemobilia: Review of recent experience with a worldwide problem. Am J Gastroenterol 82: 448-453, 1987
- 3) 泉田洋司, 和泉 宏, 安井 達ほか: 胆嚢結石に起因したhemobilia. 消外 7: 611-616, 1984
- 4) Sandblom P: Hemorrhage into the biliary tract following trauma, "Traumatic Hemobilia". Surgery 24: 571-586, 1948
- 5) 坂元洋一, 松毛真一, 高橋康幸: 胆嚢炎に起因する胆嚢出血の1例. 日消外会誌 25: 2388-2392, 1992
- 6) Wu TC, Liu TJ, Ho YJ: Pseudoaneurysm of the cystic artery with upper gastrointestinal hemorrhage. Acta Chir Scand 154: 151-152, 1988
- 7) Barba CA, Bret PM, Hinchey EJ: Pseudoaneurysm of the cystic artery: A rare cause of hemobilia. Can J Surg 37: 64-66, 1994
- 8) Smague EA, Schulte F, Guse S: Rezidivierende hemobilie aufgrund eines in der gallenblase rupturierten pseudoaneurysma der arteria cystica. Chirurg 61: 199-200, 1990
- 9) Read A, Lannan M, Chou ST et al: Bleeding cystic artery aneurysm: rare cause of haemobilia. Aust N Z J Surg 61: 159-161, 1991
- 10) Hakami M, Beheshti GH, Amirkhan A et al: Hemobilia caused by rupture of cystic artery aneurysm. Am J Proctol 27: 56-57, 1976
- 11) Reddy SC: Pseudoaneurysm of cystic artery with upper gastrointestinal hemorrhage. South Med J 76: 85-86, 1983
- 12) Rhee JW, Bonnheim DC, Upson J: Cystic artery pseudoaneurysm. N Y State J Med 87: 47, 1987
- 13) Czerniak A, Thompson JN, Hemingway AP et al: Hemobilia: A disease in evolution. Arch Surg 123: 718-721, 1988
- 14) Adam R, Fabiani B, Bismuth H et al: Hematobilia resulting from heterotopic stomach in the gallbladder neck. Surgery 105: 564-569, 1989
- 15) Clements WDB, Wilson RH, Crothers JG et al:

- Pseudoaneurysm of the cystic artery following cholecystectomy. *J R Coll Surg Edinb* 38 : 348—349, 1993
- 16) Zilberstein B, Ceconello I, Ramos AC et al : Hemobilia as a complication of laparoscopic cholecystectomy. *Surg Laparosc Endosc* 4 : 301—303, 1994
- 17) Strickland SK, Khoury MB, Kiproff PM et al : Cystic artery pseudoaneurysm : A rare cause of hemobilia. *Cardiovasc Intervent Radiol* 14 : 183—184, 1991
- 18) Devin R, Mambrini A, Winninger A et al : A case of aneurysm of the cystic artery ruptured into the gallbladder. *Chirurgie* 97 : 332—335, 1971

A Case of Cystic Artery Pseudoaneurysm of the Gallbladder

Yoshiro Matsuba, Masatshi Suzuki and Yoshimasa Ono
Department of Gastroenterological Surgery, Mishuku Hospital

A case of cystic artery pseudoaneurysm is reported. A 72-year-old woman consulted a private medical doctor for right hypochondral pain and vomiting. Biliary colic was suspected and she was sent to our hospital. Before admission, she had no melena or hematemesis. Her serum total bilirubin, transaminase, alkaline phosphatase, and γ GPT levels were slightly elevated. Abdominal US revealed a tumor-like lesion about 3 cm in diameter at the neck of the gallbladder. In its center, there was a cystic, pulsating area. Color Doppler US showed flow signals in the cystic area. An abdominal CT scan revealed a round mass at the gallbladder neck. The cystic area was markedly enhanced on early phase dynamic CT. High density contents in the gallbladder and dilated common bile duct were also demonstrated. An arteriogram of the proper hepatic artery revealed cystic artery pseudoaneurysm. On the 2nd day after admission, open cholecystectomy was performed and a T-tube was placed in the common bile duct. Histological examination of the resected specimen revealed a deep ulceration at the neck of the gallbladder with a ruptured cystic artery at the bottom. A round hematoma with a fibrous cavity filled with blood was situated on the ulceration.

Reprint requests: Yoshiro Matsuba Department of Gastroenterological Surgery, Mishuku Hospital
5-33-12 Kamimeguro, Meguroku, Tokyo, 153 JAPAN
