

胆嚢炎に併発した spontaneous biloma の1例

関西医科大学第2外科

加藤 泰規 濱田 吉則 毛利 隆 日置紘士郎

外傷, 医療行為など外作用に伴わず発症する biloma は spontaneous biloma と分類される. 今回, 我々は胆嚢炎に合併した spontaneous biloma (本症) の1例を経験したので報告する. 症例は53歳の女性で, 発熱と心窩部痛を初発症状とし, 腹部CT, 腹部超音波にて胆嚢の腫大と肝左葉下面に15×7.5×5.0大の嚢胞性病変を認めた. 手術にて胆嚢炎と線維化した biloma と診断した. Biloma の内容は, ゲル状無構造で黄緑色調を呈しており, 組織学的にフィブリン塊であった. 本症は本邦で, 自験例を含め23例の報告がある. 本症は胆嚢, 胆管結石による胆道内圧上昇によるものが多いが, 本症例は胆嚢頸部の炎症性閉塞による胆嚢内圧上昇を主因とし発症したと思われた.

Key words: spontaneous biloma, cholecystitis, spiral-computed tomography

はじめに

Biloma は上皮化組織により被包化された胆道系外胆汁貯留と定義される胆汁性嚢胞である. 外傷や外科的処置後に多く認められるが, まれに特発性 (spontaneous) に発生する場合がある. 今回, 我々は胆嚢炎に併発した spontaneous biloma (以下, 本症と略す) と考えられるまれな症例を経験したので, 本症の本邦報告の集計を行い, その臨床像について考察を加えて報告する.

症 例

症例: 53歳, 女性

主訴: 心窩部痛, 発熱

家族歴: 特記すべきことなし.

既往歴: 46歳, 肺炎

現病歴: 平成5年7月中旬頃より心窩部痛および38°C台の発熱が持続するため近医受診し, 7月19日に上部消化管X線造影検査を施行されたが異常所見は認められなかった. しかしその後も症状が改善しないため, 精査, 加療目的に平成5年7月23日入院となった.

入院時現症: 37.7°Cの発熱を認めた. 皮膚および眼球結膜の黄染は認められなかった. 右季肋部に圧痛を認めたが, 腹膜刺激症状はなく腫瘍も触知しなかった.

入院時検査成績: 著明な白血球増多とCRPの上昇, およびトランスアミナーゼの上昇を認めた (Table

1).

腹部超音波検査 (US): 胆嚢の腫大と胆嚢内に胆泥と思われる音響陰影を認めた. 肝左葉外側区域下面に嚢胞を認めた. 嚢胞は6.7×5.5cm大で low echoic, 内部に隔壁を有した (Fig. 1).

腹部CT所見: 造影CT上, 肝左葉外側区域下面に7.1×6.0cm大の嚢胞を認め, 嚢胞内部は均一に low density であった. 胆嚢は緊満性に腫大し, 壁肥厚を認めた (Fig. 2).

経静脈的胆道造影 (DIC) 下 spiral CT 所見: 胆嚢管は描出されたが胆嚢は造影されなかった. 肝内胆管, 総胆管に拡張は認められなかった. また嚢胞と胆道系に交通は認められなかった (Fig. 3).

以上より慢性胆嚢炎の急性増悪の診断と, biloma を併発した可能性を考慮し, 平成5年8月4日手術を施

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	17,100 /mm ³	BUN	14.0 mg/dl
Stab	15 %	Cr	0.9 mg/dl
Seg	71 %	GOT	133 IU/l
Lym	11 %	GPT	115 IU/l
RBC	459×10 ⁴ /mm ³	Alp	254 IU/l
Hb	12.6 g/dl	γ-GPT	32 IU/l
Ht	40.4 %	LAP	199 IU/l
Plt	24.0×10 ⁴ /mm ³	T. Bil	0.8 mg/dl
T.P	7.6 g/dl	D. Bil	0.3 mg/dl
Alb	4.1 g/dl	LDH	502 IU/l
Na	138 mEq/l	AMY	581 IU/l
K	3.5 mEq/l	T. Chol	216 mg/dl
Cl	91 mEq/l	CRP	33.17 mg/dl

<1998年4月22日受理>別刷請求先: 加藤 泰規
〒570-8507 守口市文園町10-15 関西医科大学第2
外科

Fig. 1 Abdominal ultrasonography on admission revealed multiloculated hypo-isoechoic lesion below the lateral segment of the liver.

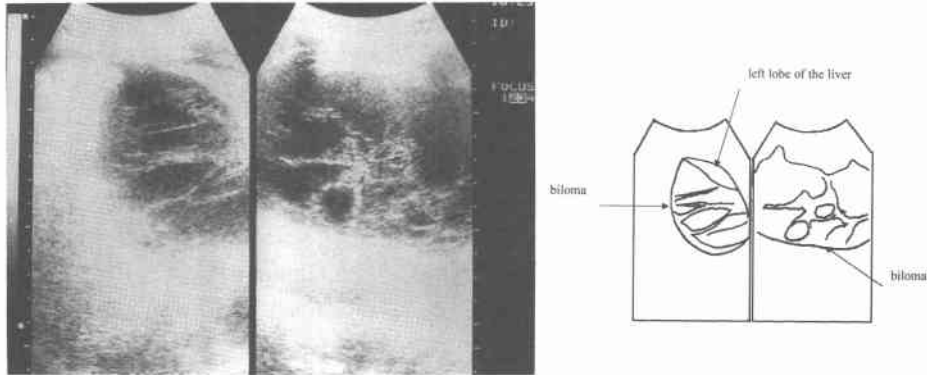
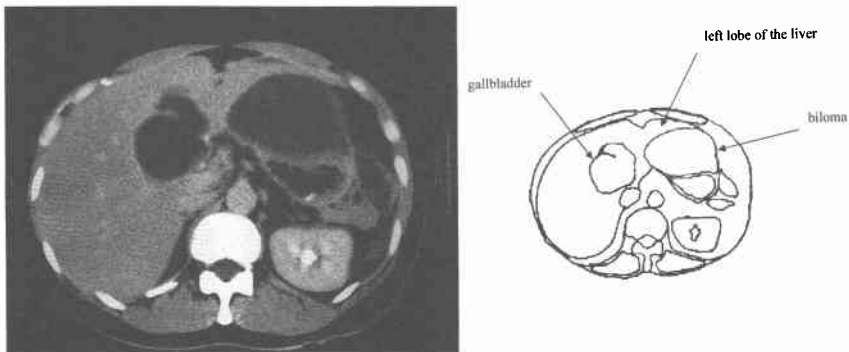


Fig. 2 Contrast enhanced abdominal computed tomography scan revealed a dilated gallbladder with low-attenuation cyst between the lateral segment of the liver and stomach.



行した。

開腹所見：肝表面は平滑で肝硬変は認めず、腹水も認めなかった。肝左葉外側区域下面と胃体部、脾に囲まれた部位に、弾性軟で表面平滑、黄緑色の嚢胞を認めた。嚢胞は容易に剝離可能で肝、胃と明らかな連続性は認められなかった。胆嚢は大網との癒着が高度で、著明な壁肥厚と腫大を認めた。肝床部との癒着も高度であった。手術は胆嚢摘出術および嚢胞摘出術を施行した。

切除標本：胆嚢粘膜は広範に剝離し、胆嚢壁は著明な肥厚と一部壊死を認めた。胆嚢内胆汁は白色漿液性を呈していた。胆嚢内結石は認められなかったが、胆嚢管は頸部で閉塞していた。胆汁中からは *streptococcus faecalis* が検出された。嚢胞は15×7.5×5.0cm、重量は135gであった。表面は平滑、弾性軟で黄緑色を呈し、断面は繊維性隔壁様構造が見られゲル状の内容

物が充満しており、少量の液性成分の流出を認めた (**Fig. 4**)。

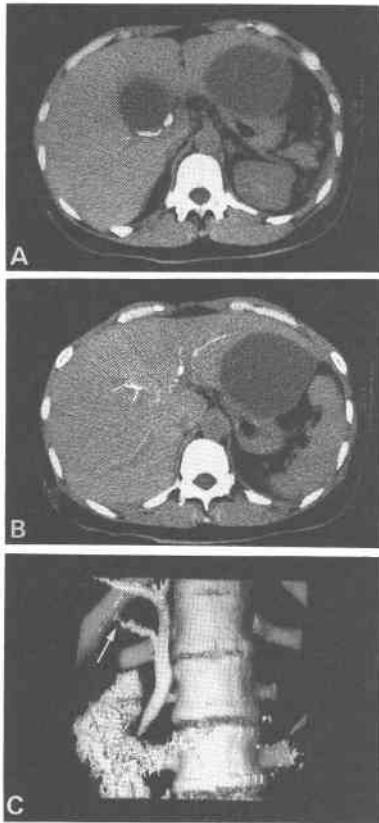
組織学的所見：胆嚢粘膜上皮は剝離したリンパ球を主体とした炎症性細胞の浸潤が認められ、胆嚢頸部付近に全層性の壊死を認めた。漿膜下層は肥厚し線維化と出血がみられ、漿膜面にフィブリンの析出を認めた。嚢胞のゲル状成分はフィブリンが主体で、好中球が散見された。生化学検査上ビリルビンが検出され、biloma と診断した。

術後経過：経過は順調で術後第14病日に退院となり、術後4年を経た現在も経過良好である。

考 察

Gould ら¹⁾が1979年に鈍的外傷による肝外性の腹腔内嚢胞を biloma と命名して以来、幾多の報告がなされてきた。Biloma は線維化組織により被包化された胆道系外胆汁貯留と定義される胆汁性嚢胞である。外

Fig. 3 Intravenous cholangiography with spiral computed tomography: (A) No contrast medium was observed in the dilated gallbladder. (B) No dilatation of the intrahepatic bile ducts was observed. (C) Three dimensional reconstruction of the biliary images revealed a normal sized choledochus with no visualization of the gallbladder. Arrow shows the obstruction of the cystic duct.

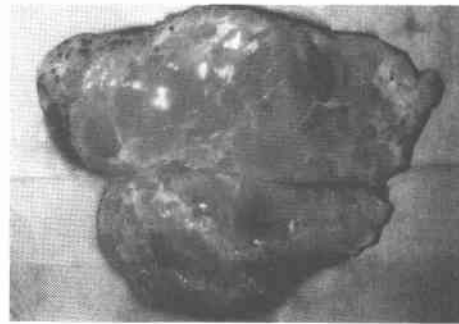


傷性、医原性、特発性 (spontaneous) に分類され²⁾、前2者の報告が多く、本症の報告はまれである³⁾。我々が調べた限り本症の本邦報告例は自験例を含め23例であった (Table 2)。以下、本邦報告例を中心にその臨床的特徴について考察する。

性差はなく、年齢は平均65.5歳と高齢層に多く認められた。高齢者に多い理由として木下ら²⁾は胆管の脆弱性と、原疾患として頻度の高い総胆管結石が高齢者に多いことを挙げている。

Biloma の臨床症状における特徴は、肝外性胆汁貯留が緩徐に起こるために線維化組織に被包化され急性の転帰を経ない。結果として臨床症状に乏しく、周囲

Fig. 4 The cut surface findings of the resected cyst: The cyst contains fibrin turquoise in color and has some dissepiments. The cyst measured 15.0×7.5×5.0cm in size and weighed 135g.



臓器への圧迫症状ではじめてその存在が疑われる⁴⁾。本邦報告例でも biloma そのものに起因する腹部膨法は1例のみで、発熱・腹痛・黄疸などの胆道系炎症所見が全例に認められた。

原疾患別に見ると本邦報告23例中19例に胆道内圧上昇を来たす病態が認められた。その内訳は総胆管結石9例 (39.1%)、総胆管結石と胆嚢結石6例 (26.1%)、胆嚢結石症1例、その他胆嚢癌1例、閉塞性黄疸1例、肝膿瘍1例であった。すなわち本症の発生因のなかで胆道系内圧亢進の主因は結石で、全体の70%を占めていた。

発生部位では肝左葉近傍が10例のうち外側区域が8例 (34.8%) と多かった。次いで右葉が5例、右上腹部が2例で、不明は4例であった。肝左葉外側区域に最も多い理由として尾関ら⁵⁾は肝実質が最も菲薄であるという構造的背景が関与していると述べている。

Biloma の診断には US, CT などが有用である。US では上腹部に位置した内部無エコー、大きな嚢胞であることが特徴⁶⁾とされており、CT では形態学的特徴において US 所見とほぼ同じで、それに加えて CT 値 20 H 以下が特徴とされている⁷⁾。しかし、尾関ら⁵⁾は画像による診断には限界があり、確定診断には US ガイド下の穿刺による胆汁成分の証明⁸⁾が必要不可欠であるとしている。

胆道系との交通は Table 2 に示すごとく14例において確認され、胆嚢が6例、左葉外側区域が5例、右枝、左枝、総胆管前壁との交通が各1例であった。胆道系との交通は^{99m}Tc dimethyliminodiacetic acid を用いた肝胆道シンチグラフィが有用とされている⁹⁾。本症例では診断に際しては DIC 下 spiral CT により

Table 2 Reported cases of spontaneous biloma in Japan

Case	Year	Author	Sex	Age	Primary disease	Location	Fistula	Procedure
1	1980	Sato	M	54	choledocholithiasis	lesser sac	unknown	cholecystectomy, choledocholithotomy, drainage
2	1983	Fuchigami	M	47	liver abscess	below rt-L, lt-L	right branch	drainage, ?
3	1983	Isbashi	F	65	cholangiocarcinoma	lt-abdominal cavity	lateroinferior branch	drainage, laparotomy
4	1986	Sawada	M	71	cholecystolithiasis, choledocholithiasis	subcapsular rt-L	GB	drainage, cholecystectomy, choledocholithotomy
5	1986	Suzuki	F	48	cholecystolithiasis, choledocholithiasis	whole abdominal cavity	unknown	cholecystectomy, choledocholithotomy, drainage
6	1986	Miyoshi	F	58	cholecystolithiasis, choledocholithiasis	below lt-L~lt-phrenic cavity	cervix of GB	cholecystectomy, choledocholithotomy, partly liver resection
7	1986	Tanimoto ³⁾	F	71	choledocholithiasis	below lt-L~lt-abdominal cavity	laterosuperior branch	drainage, choledocholithotomy
8	1988	Doi	F	71	choledocholithiasis	lt-abdominal cavity	left branch	?
9	1989	Hirohashi ⁴⁾	M	76	choledocholithiasis	below lt-L~ren	unknown	drainage, choledocholithotomy
10	1989	Kinoshita	M	76	obstructive jaundice	upper abdominal cavity	lateral segment	drainage, cholecystectomy, choledochostomy
11	1991	Suda	M	52	acute pancreatitis, acalculus cholecystitis	upper abdominal cavity	bottom of GB	drainage, cholecystectomy
12	1991	Fuku	M	70	choledocholithiasis	below lt-L	unknown	cystectomy, mucoclasia, choledocholithotomy
13	1992	Ozeki ⁵⁾	M	63	choledocholithiasis	subcapsular lt-L	laterosuperior branch	drainage, cholecystectomy, choledocholithotomy
14	1992	Ootaki	F	58	choledocholithiasis	subcapsular lt-L	unknown	cholecystectomy, choledocholithotomy
15	1992	Ootaki	M	78	acalculus cholecystitis	subcapsular lt-L	bottom of GB	drainage, cholecystectomy
16	1992	Ootaki	M	69	Cholecystolithiasis, acute cholecystitis	lateral lt-L	GB	PTGBD, cholangioscopic choledocholithotomy
17	1993	Nakajima	M	55	choledocholithiasis	below lt-L	unknown	drainage, cholecystectomy, choledocholithotomy
18	1993	Yoshii	M	81	cholecystolithiasis, choledocholithiasis	lateral lt-L, multiple intrahepatic	unknown	drainage, endoscopic papillotomy
19	1995	Sakata	M	73	cholecystolithiasis, choledocholithiasis	lt-upper abdominal cavity	unknown	drainage
20	1995	Tanida	F	85	cholecystolithiasis, choledocholithiasis	around GB	choledochus	cholecystectomy, choledocholithotomy
21	1996	Kinoshita ²⁾	M	64	choledocholithiasis	lesser sac	lateroinferior branch	drainage, cholecystectomy, choledocholithotomy
22	1997	Banno	M	69	intrahepatic calculus, acute cholecystitis	around GB	cervix of GB	cholecystectomy, choledocholithotomy
23		Present case	F	53	chronic cholecystitis	below lt-L	GB	cholecystectomy, cystectomy

rt-L: liver right lateral segment, lt-L: liver left lateral segment, GB: gallbladder, PTGBD: percutaneous transhepatic gallbladder drainage

胆道系の有無を検索したが明らかな交通は認められなかった。

治療は近年、医原性、外傷性の biloma では開腹ドレ

ナージなしに治癒したとの報告例も増加している¹⁰⁾。一方、本症の治療は、胆道系疾患が原因となることが多いため、全身状態不良などの特殊な状況を除き、23

例中19例に開腹手術が行われている。うち15例(65.2%)は穿刺ドレナージ後に開腹手術が施行されているが、穿刺ドレナージは診断のための処置であり、主たる治療は原因疾患に対する外科手術によらざるをえない。

本症の成因は胆道系内圧上昇に起因するとされている¹¹⁾。本邦報告例からは胆嚢から胆汁漏出を認めた症例が6例(26.1%)と最多であった。これらはいずれも急性胆嚢炎、うち4例は無石胆嚢炎に続発したもので、胆嚢壁には壊死性の変化が認められている。自験例では慢性炎症による胆嚢管の閉塞が胆嚢内圧を上昇させ、細菌感染が加わることによって胆嚢壁の循環障害を生じ、結果として胆嚢穿孔を来した¹²⁾bilomaを形成したと考えられた。結石が認められない胆嚢炎に腹腔内嚢胞を併発した症例においても、自験例の如く、慢性炎症による胆嚢管の閉塞によって本症を発症する可能性があり、鑑別診断の1つとして考慮すべきと考えられた。

文 献

- Gould L, Patel A: Ultrasound detection of extrahepatic encapsulated bile: "Biloma". *Am J Roentgenol* 132: 1014-1015, 1979
- 木下 淳, 菊池友允, 熊沢健一ほか: 肝内胆管破裂により Biloma を形成した1例. *腹部救急診療の進歩* 9: 135-137, 1989
- 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, 1985
- 廣橋喜美, 原田貞美, 佐藤清治ほか: 肝外胆汁性嚢胞いわゆる "Biloma" の1治験例. *日消外会誌* 22: 2445-2448, 1989
- 尾関 豊, 安村幹央, 木村富彦ほか: 胆石症に伴った肝被膜下 biloma の1例. *胆と膵* 13: 1329-1333, 1992
- Zegel HG, Kurtz AB, Perlmutter GS et al: Ultrasonic characteristics of bilomas. *J Clin Ultrasound* 9: 21-24, 1981
- Vazquez JL, Thorsen MK, Dodds WJ et al: Evaluation and treatment of intraabdominal bilomas. *Am J Roentgenol* 144: 933-938, 1985
- Vujic I, Brock JG: Biloma: Aspiration for diagnosis and treatment. *Gastrointest Radiol* 7: 251-254, 1982
- Weissmann HS, Chun KJ, Frank M et al: Demonstration of traumatic bile leakage with cholecintigraphy and ultrasonography. *Am J Roentgenol* 133: 843-837, 1979
- Binmoeller KF, Katon RM, Shneidman R: Endoscopic management of postoperative biliary Leaks: review of 77 cases and report of two case with biloma formation. *Am J Gastroenterol* 86: 227-231, 1991
- Gough AL, Edwards AN, Keddie NC: Spontaneous perforation of the common hepatic duct. *Br J Surg* 63: 446-448, 1976
- 中澤俊郎, 能澤明宏, 小林 勲ほか: 穿通性肝膿瘍を合併した急性胆嚢炎の1例. *胆道* 11: 383-388, 1997

A Case of Spontaneous Biloma with Cholecystitis

Yasunori Kato, Yoshinori Hamada, Takashi Mouri and Koshiro Hioki
Second Department of Surgery, Kansai Medical University

53-year-old woman was admitted with fever and epigastralgia. An abdominal enhanced CT scan and ultrasound examination revealed enlargement of the gallbladder and a cystic lesion below the left lobe of the liver, indicating probable cholecystitis and a biloma. Cholecystectomy with resection of the cyst was performed. The cyst contained turquoise-colored fibrin. Our case was classified as one of spontaneous biloma that had no evidence of trauma or iatrogenic injury. Twenty-two other cases of spontaneous biloma were previously reported in Japan. In our case, the biloma was thought to have been due to biliary leakage from the gallbladder with severe cholecystitis, in which obstruction of the cystic duct with infective hydrops had progressed. Thus, in case of severe cholecystitis with an intraabdominal cystic lesion, the presence of spontaneous biloma should be suspected in the differential diagnosis.

Reprint requests: Yasunori Kato Second Department of Surgery, Kansai Medical University
10-15 Fumizono, Moriguchi, 570-8507 JAPAN