

慢性閉塞性膵炎を伴った intraluminal duodenal diverticulum の 1 例

松戸市立病院外科

尾形 章 大野 一英 升田 吉雄 遠藤 文夫
新井 竜夫 増田 益功 笹田 和裕

症例は 18 歳の女性。突然の嘔気と上腹部痛を訴えた他院受診し膵炎および intraluminal duodenal diverticulum (IDD) の診断にて当科紹介，入院となった。上部消化管造影にて十二指腸第 2 部腔内に約 2mm の薄い嚢状の透亮像を認め，MRCP では腹側膵および背側膵の癒合部位に狭窄と上流膵管の拡張を認めた。1997 年 8 月 25 日 IDD および慢性閉塞性膵炎の診断にて十二指腸腔内憩室切除および Roux-Y 吻合による膵管空腸吻合を施行した。IDD に伴う膵炎の報告例は 18 例認められ，治療として開腹或いは内視鏡的な憩室切除にて IDD および膵炎の症状改善がなされている。しかし，自験例のごとき部位の膵管狭窄例は膵液のドレナージを要し膵管空腸吻合を必要とした。腹側膵および背側膵癒合部の狭窄は先天性異常に起因することがほとんどであるとの報告もあり自験例では IDD および膵管不完全癒合の併存の可能性が強く示唆された。

はじめに

Intraluminal duodenal diverticulum (以下，IDD と略記) は傍十二指腸に出現するまれな先天異常に基づく疾患で，管外に突出する通常型憩室に対し十二指腸腔内に嚢状の憩室である^{1)~3)}。これにより食物の通過障害が出現し腹痛を始めとした消化器症状を呈する⁴⁾。また，十二指腸内圧の上昇や十二指腸乳頭部の変形による膵炎を併発することがある⁵⁾。

今回，我々は若年者に発症した IDD を経験し，上記と異なる要因によると考えられる慢性閉塞性膵炎を伴った症例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

症例：18 歳，女性

主訴：心窩部痛および突然の嘔気

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

生活歴：飲酒歴なし。喫煙歴なし。

現病歴：子供の頃より時々突然の嘔気を出ることがあったが，放置していた。11 歳頃より心窩部痛を伴うようになっていた。1996 年 5 月心窩部痛および胃部

不快感出現し近医受診し胃炎の診断にて投薬を受ける。同年 8 月症状再燃。他院受診し膵炎の診断にて加療を受ける。1997 年 7 月 8 日再び同様の症状出現し同院にて IDD および慢性膵炎急性増悪と診断され，当院紹介となる。

入院時現症：身長 152cm，体重 56kg，体温 35.8℃。眼瞼結膜および眼球結膜に異常なし。腹部は平坦で，腫瘤の触知なく圧痛も消失していた。

入院時検査所見：血液一般にて軽度の貧血を認めるものの白血球の増加なく，生化学検査でも異常なく当院入院時には血中および尿中アミラーゼは正常化していた。また，腫瘍マーカーとし CEA および CA19-9 は正常範囲内にあり，膵外分泌能を示す PFD テストは 22.6% と低値を示した。また，空腹時血糖は 87mg/dl であった。

上部消化管 X 線造影検査：胃および十二指腸球部に問題なく，十二指腸第 2 部腔内に約 2mm の薄い透亮像を有する西洋梨型の嚢状陰影を認めた (Fig. 1)。

腹部超音波検査：肝および胆道に問題なく，膵体尾部の腫大と同部の膵管の拡張を認めた。膵管狭窄部付近の膵実質内に石灰化を認めた。膵内には腫瘍陰影は認めなかった。

腹部 CT 検査：腹部超音波とほぼ同様の結果を認めた。

Fig. 1 Upper gastrointestinal X-ray examination showed a filling defect in the second portion on the duodenum. This defect had a smooth lumen that filled barium from the proximal end.



Fig. 2 Endoscopic retrograde cholangiopancreatography showed a stricture of the pancreatic duct and upstream dilation (arrow : the stricture 's point and star : upstream dilation)



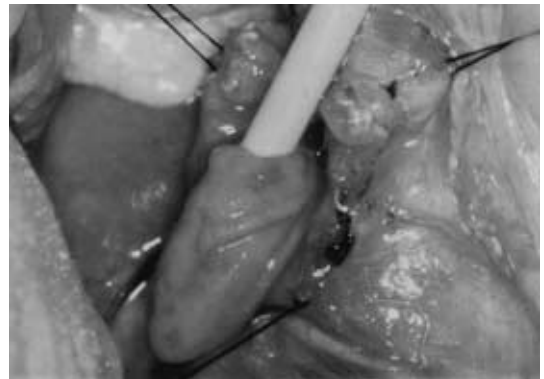
ERCP 検査：膵頭部において Wirsung 管の狭窄を認め、それより上流膵管の拡張を認めた (Fig. 2) . なお、内視鏡的に十二指腸内腔の確認が難しく、副乳頭を確認はできなかった .

MRCP 検査：ERCP とほぼ同様の所見で、Santorini

Fig. 3 Magnetic resonance cholangiopancreatography showed a stricture at fusion of dorsal and ventral ducts and upstream dilation.(arrow : Wirsung duct)



Fig. 4 Macroscopic findings showed the intraluminal diverticulum like mucosal pocket inserted with a Nelaton 's catheter by longitudinal duodenotomy.



管は確認できなかったが、膵管狭窄部は腹側膵と背側膵の癒合部位とほぼ考えることができた (Fig. 3) .

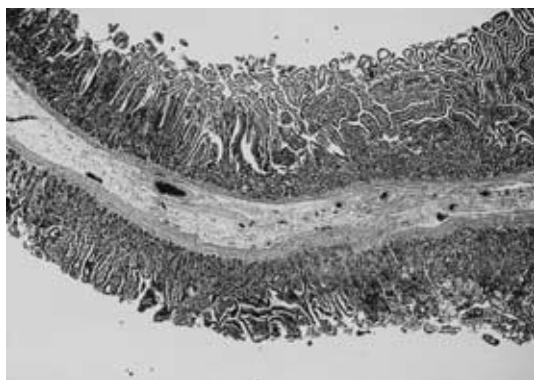
以上より、IDD および慢性閉塞性膵炎 (腹側膵管と背側膵管合流部狭窄) の診断にて 1997 年 8 月 25 日開腹手術を行った .

手術所見：やや萎縮ぎみの膵頭部と全体に硬化し肥大した膵体尾部を認め、十二指腸は触診上異常は指摘できなかった . 十二指腸第 2 部を斜切開すると袋状となった粘膜が認められ IDD を確認した (Fig. 4) . これにより腔内憩室部を切除し十二指腸を閉鎖した . 術中

超音波にて拡張膵管を確認後、膵体部を膵管に沿い切開し狭窄部近傍の膵組織採取したのち Roux-Y 吻合による膵管空腸吻合を施行した。

切除標本：長径 25mm, 短径 15mm の両側に十二指腸粘膜を有する憩室であった。

Fig. 5 Microscopic specimens was lined on a typical duodenal mucosa and submucosa on both sides with a few muscle and connective-tissue fibers(H-E stain $\times 6.6$)



病理所見：憩室は両側に十二指腸粘膜を有してその間に粘膜筋板と一部筋層も認めた (Fig. 5). 膵組織は悪性細胞は認められず, 小葉間の線維化が著明でいわゆる膵硬変像を呈した。

術後はほぼ順調な経過を示し, 術後 1 か月後の PFD テストは 69.5% とほぼ正常化した。4 年後の現在では腹痛の出現はなく, 糖尿病など代謝異常は全く現れていない。

考 察

IDD は 1885 年に Silcock ら¹⁾が剖検例において指摘したことには始まり, 1947 年 Nelson²⁾は “congenital diaphragm of the duodenum” として最初に臨床的に診断した。1949 年 Kinzer³⁾は同疾患を intraluminal duodenal diverticulum と呼び, 以後この名称で呼ばれるようになった。

その成因として現在有力とされているのは不完全十二指腸隔膜説である。胎生の 6~7 週頃, 腸管内腔が過剰に増殖した上皮で充満するが, 腸管の発育につれて内腔の空胞化とその癒合が起こり, 胎生 8~10 週には腸管の再疎通 recanalization が完成する^{6,7)}。この現象は食道, 十二指腸, 直腸で認められる。この空胞の癒合が不完全に起こり不完全十二指腸隔膜が生じる。こ

Table 1 Reported cases of Intraluminal duodenal diverticulum with pancreatitis

No	Authors	Age/Sex	Duration of symptoms (no. of attacks)	Treatment(approach/method)	
1	Buisseret et al. ¹⁶⁾	35 F	single attack	surgery	excision of div.
2	Pergola et al.	40 M	> 2 years	surgery	excision of div.
3	Nance et al. ⁴⁾	41 M	3 months	surgery	excision of div.
4	Martinotti et al.	25 F	12 years	surgery	excision of div. sphincteroplasty
5	Jansen	15 F	9 months	surgery	excision of div.
6	Lawson ¹⁷⁾	14 M	single attack	surgery	decompression of div.
7	Sicard et al.	22 M	single attack	surgery	excision of div.
8	Nosher et al.	42 F	since childhood	none	
9	Economides et al. ¹⁸⁾	27 F	single attack	surgery	excision of div.
10	Griffin et al. ¹¹⁾	35 M	10 years	surgery	excision of div.
11	Howard et al.	14 F	single attack	surgery	excision of div.
		19 F	single attack	surgery	excision of div.
13	Willemer et al. ²⁰⁾	22 M	2 years	surgery	excision of div.
14	Hartley et al.	27 F	7 months	surgery	excision of div.
15	Kollias et al. ¹⁹⁾	21 F	12 months	surgery	excision of div.
16	Finnie et al.	41 M	2 months	endoscopy	incision of div. sphincterotomy
17	Al-Mulhim et al.	32 M	6 years	surgery	excision of div.
18	Huang et al. ¹³⁾	11 F	2 months	surgery	excision of div.
19	Present case	17 F	6 years	surgery	excision of div. pancreaticojejunostomy

div. : diverticulum

の不完全十二指腸隔膜が腸の蠕動運動と食物などの圧力によって十二指腸腔内の肛門側へ伸展し袋状となり腔内憩室を形成していくものと推論されている^{4,8)}。

Hiraokaら⁹⁾は1985年に自験例10を含めたIDD報告例101例を検討した。発症年齢は7~76歳で、20~59歳の成人例が78例(77%)と多く19歳以下は11%とむしろ少なかったとし、性別はやや男性に多いとした。症状としては食後の腹痛および腹満が最も多く、合併症として上部消化管出血、胆管炎、膵炎が出現することを報告した¹⁰⁾⁻¹²⁾。

IDDによる膵炎は報告例中約20%に出現するとKarollら⁵⁾は報告している。その病因として一般に受け入れられているmechanismは2つの要素による膵管内への十二指腸内容の逆流である。すなわち、拡張した憩室による十二指腸閉塞であり、また十二指腸蠕動により拡張した憩室が乳頭部を変形させることによるOddiの括約筋障害である。

Huangら¹³⁾はIDDに閉塞性慢性膵炎を併発した症例を報告した。その症例は手術中の膵管造影により拡張した主膵管とともに副膵管の拡張を認め、乳頭の変形を原因に記載した。ところが自験例ではほぼ腹側膵と背側膵の合流部の狭窄と上流膵管の拡張でSantorini管ははっきりしなかった。Belberら¹⁴⁾は腹側膵と背側膵の合流部狭窄症例を報告し、これは先天性の要因によるものと述べ、広岡ら¹⁵⁾も腹側、背側両膵管の癒合にはincomplete fusionが存在し膵炎の原因となりうることを報告しており、自験例でも不完全癒合を強く疑うことが可能であった。

IDDは先天性異常に基づく疾患であり、その他の先天性異常を合併することが報告される。Down症候群、輪状膵、choledocoele、内臓逆位、腸回転異常、メッケル憩室、鎖肛、Hirschsprung病、上腸間膜動脈症候群、omphalocele、鼠径ヘルニア、腎低形成、心疾患などの報告^{5,16)-18)}があり、Kolliasら¹⁹⁾およびWillemerら²⁰⁾はIDDとpancreas divisumの合併した症例を報告している。

膵臓は十二指腸の内胚葉上皮に由来する2つの原基より形成される。腹側膵原基は胎生6~7週に腸回転と共に背側膵原基と癒合しその後、背側膵管と腹側膵管が交通し膵臓は完成する²¹⁾。これらの発生は十二指腸発生と同時に進行して起こり、自験例では十二指腸の不完全隔壁と膵管不完全癒合が同時期に起こった可能性を容易に想像できた。

文献的に膵炎を合併したIDDは過去に18例を認め

る。その治療としてTable 1に示すごとく16例(89%)が手術的な憩室切除、1例は内視鏡的乳頭切開を含む内視鏡的憩室切除でほぼ膵炎の改善がなされている。ただし、自験例において切除のみでは膵炎の改善はほぼ不可能であり、膵管空腸吻合を行うことが必要であると考えられた。

以上、慢性閉塞性膵炎を伴ったIDD症例を経験した。膵炎の原因として膵管の不完全癒合の可能性を強く示唆され、憩室切除と共に膵管空腸吻合にて根治しえた。膵炎を伴うIDDを経験した場合には膵管全体を把握することが最も重要であり、MRCPはIDDに邪魔されることなく全膵管を描出可能にし診断に最も役立つ検査と考えられた。

文 献

- 1) Silcock AQ: Epithelioms of ascending colon; entero-colitis; congenital duodenal septum, with internal diverticulum. Trans Pathol Soc London 36: 207, 1885
- 2) Nelson WL: Congenital diaphragm of the duodenum. Case report with preoperative x-ray studies. Minn Med 30: 745-752, 1947
- 3) Kinzer RE: Intraluminal diverticulum and other lesions producing intermittent duodenal obstruction or stasis. AJR 61: 212-218, 1949
- 4) Nance FC, Cocchiara, Kinder JL: Acute pancreatitis associated with an intraluminal duodenal diverticulum. Gastroenterology 52: 544-547, 1967
- 5) Karoll MP, Ghahremani GG, Port RB et al: Diagnosis and management of intraluminal duodenal diverticulum. Dig Dis Sci 28: 411-416, 1983
- 6) Tandler J: Zur Entwicklungsgeschichte des menschlichen Duodenums in frühen Embryonalstadium. Morph Jahrb 29: 187-216, 1902
- 7) Boyden EA, Cope JG, Bill AH: Anatomy and embryology of congenital intrinsic obstruction of the duodenum. Am J Surg 114: 190-202, 1967
- 8) Newman A, Nathan MH: Intraluminal diverticulum of the duodenum in a child. Am J Roentgenol 103: 326-329, 1968
- 9) Hiraoka T, Nakamura M, Ohno K et al: Endoscopic excision of intraluminal duodenal diverticulum. Dig Dis Sci 30: 274-281, 1985
- 10) Nance FC: Intraluminal duodenal diverticula. Surg Gynecol Obstet 125: 613-618, 1967
- 11) Griffin M, Carey WD, Hermann R et al: Recurrent acute pancreatitis and intussusception complicating an intraluminal duodenal diverticulum. Gastroenterology 81: 345-358, 1981
- 12) Seyring JA, Chmbon J, Frisch J et al: Cholestasis

- caused by an intradiverticular bezoar. Endoscopic treatment. *Gastroenterol Clin Biol* 13 : 741-743, 1989
- 13) Huang FC, Chuang JH, Ko SF : Intraluminal diverticulum presenting as obstructive chronic pancreatitis. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 27 : 593-595, 1998
- 14) Belber JP, Bill K : Fusion anomalies of the pancreatic ductal system : differentiation from pathologic states. *Radiology* 122 : 637-642, 1977
- 15) 広岡大司, 大地宏昭, 植高文夫ほか : 膵管合流異常並びに不完全癒合例と膵炎について. *Gastroenterol Endosc* 30 : 380-386, 1988
- 16) Buisseret E, Van Den Eynde P : Un Type particulier de diverticule duodenal. *Acta Gastroenterol Belg* 25 : 129-132, 1962
- 17) Lawson TL : Intraluminal duodenal diverticulum. A rare cause of acute pancreatitis. *Am J Dig Dis* 19 : 673-677, 1974
- 18) Economides NG, Fortner TM, Dunavant WD : Duodenal diaphragm associated with superior mesenteric artery syndrome. *Am J Surg* 141 : 274-276, 1981
- 19) Kollias J, Toouli J : Duodenal web and pancreas divisum causing pancreatitis in an adult. *HPB Surg* 7 : 231-235, 1994
- 20) Willemer S, Dombrowski H, Adler G et al : Recurrent acute pancreatitis and intraluminal duodenal diverticulum. *Pancreas* 7 : 257-261, 1992
- 21) Dowson W, Langman T : An anatomical-radiological study on the pancreatic duct pattern in man. *Anat Rec* 139 : 59-68, 1961

A Case of Intraluminal Duodenal Diverticulum with Chronic Obstructive Pancreatitis

Akira Ogata, Kazuhide Oono, Yoshio Masuda, Fumio Endou, Tatsuo Arai,
Yoshinori Masuda and Kazuyuki Sasada
Department of Surgery, Matsudo Municipal Hospital

An 18-year-old woman with intraluminal duodenal diverticulum (IDD) and chronic obstructive pancreatitis suffered occasional nausea and had a 6-year history of episodes of increasingly upper abdominal pain. Upper gastrointestinal radiography showed a pocket-like lesion extending caudally in the second portion of the duodenum. Magnetic resonance cholangiopancreatography revealed stricture of the main pancreatic duct at the pancreatic head and upstream dilation. A preoperative diagnosis of IDD and chronic obstructive pancreatitis was made, necessitating excision of the IDD at duodenotomy and a Roux-Y lateral pancreaticojejunostomy. Symptoms completely disappeared and pancreatic exocrine function recovered to within normal ranges. In the literature, 18 cases of pancreatitis combined with IDD have been reported thus far and most were treated with excision of the IDD surgically or endoscopically. In our case, pancreaticojejunostomy was needed to eliminate pancreatitis, because stricture of the pancreatic duct was present at the fusion of dorsal and ventral pancreatic ducts. Such strictures have been reported mostly associated with congenital anomalies. We concluded that chronic obstructive pancreatitis with IDD was caused by incomplete fusion of the pancreatic ducts.

Key words : intraluminal duodenal diverticulum, chronic obstructive pancreatitis

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 35 : 1620-1624, 2002]

Reprint requests : Akira Ogata Department of Surgery, Matsudo Municipal Hospital
4005 Kamihongou, Matsudo-shi, 271-8511 JAPAN