

症例報告

胃に異所性開口する重複胆管結石症の1例

八戸市立市民病院外科, 同 病理*

田村 孝史 水野 豊 澤 直哉 岡本 道孝
寺澤 孝幸 岩見 大二 長谷川達郎 上野 達之
三浦 一章 方山 揚誠*

症例は71歳の女性で、腹痛を主訴に当院救急外来を受診し超音波検査、腹部CTで総胆管結石を認め入院となった。上部消化管内視鏡検査で胃体上部小彎より胆汁が流出するのを認め、ERCPでは総胆管結石と陰影欠損を伴った異所性の胆管像を認めた。総胆管結石症および異所性胆管結石症として開腹術を施行した。手術所見では左肝管から分岐し小網内を胃小彎に向かって横走して胃体上部に開口している重複胆管を認めた。結石は総胆管内と重複胆管内に存在した。手術は胆嚢摘除および総胆管切石、胃壁部分切除を含む重複胆管切除を施行した。病理組織学的には後天性の瘻孔ではなく先天性の重複胆管であることが示唆された。重複胆管はまれな症例であり、さらに重複胆管内に結石を認めた症例は非常にまれである。

はじめに

胆道系の形態異常はしばしば認められるが、重複胆管の報告はまれである。我々は胃に異所性開口する重複胆管結石症の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：71歳、女性

主訴：腹痛

既往歴/家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成16年12月腹痛を主訴に当院救急外来を受診。超音波検査・腹部CTで総胆管結石を認め精査加療目的に入院となった。

入院時検査成績：入院時の血液一般および生化学検査では、特記すべき異常所見を認めなかった。

腹部超音波検査：総胆管内に音響陰影を伴う高エコーと拡張した胆嚢を認めた。

腹部CT：拡張した総胆管内に結石を認めた。また胃と総胆管の間に異常な管腔構造物を認めた (Fig. 1)。

腹部MR：総胆管および左肝管内に大きな陰影

欠損を認めた (Fig. 2)。

上部消化管内視鏡検査：胃体上部小彎より胆汁が流入してくるのを認めた (Fig. 3)。

ERCP：総胆管内および異所性の胆管内に陰影欠損を認めた (Fig. 4)。

手術所見：上腹部正中切開で開腹した。胆管の走行を確認した際に、左肝管から分岐し、小網内を胃体上部小彎へ横走している結石を伴った異所性の胆管を認めた (Fig. 5)。異所性の胆管の術中胆道造影X線検査では造影剤が胃内へ流出した (Fig. 6)。術前には拡張した左肝管と考えられていたものが胃に開口する重複胆管であると考えられた。以上より、胆嚢摘除および総胆管切石、胃壁部分切除を含む重複胆管切除を行い、総胆管にTドレーンを留置した。

切除標本：肉眼的検査所見では結石は総胆管内に1個、異所性胆管内に1個存在しており、それぞれ2.0×2.0、1.5×1.0cm大の色素胆石のピリルビンカルシウム石であった。

病理組織学的検査所見：切除標本全長にわたり、組織学的に全周性の胆管上皮を認めた (Fig. 7)。免疫染色ではα smooth muscle actin 染色に切除標本が全長にわたり染色された (Fig. 8)。また、

<2006年9月27日受理>別刷請求先：田村 孝史
〒305-8575 つくば市天王台1-1-1 筑波大学臨床
医学系消化器外科

Fig. 1 Abdominal CT showed that a calculus in the expanded common bile duct and the aberrant lumen structure differed from common bile duct.

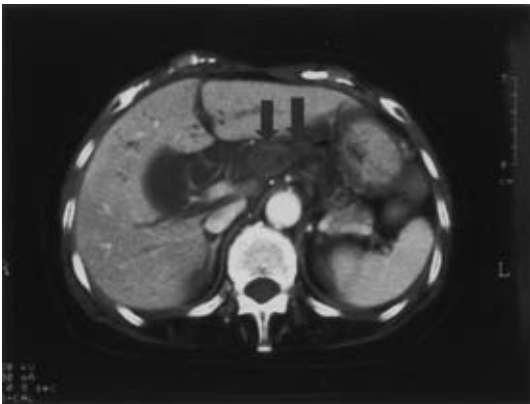


Fig. 2 Abdominal MRI delineated defect in the common bile duct and the left hepatic duct.



Fig. 3 Upper gastrointestinal endoscopy showed that bile liquid flowed into the upper body of the stomach.



Fig. 4 ERCP delineated defects in the common bile duct and the statue of ectopic bile duct.



この重複胆管の胃側の粘膜深部には一部幽門線に類似した形態を認めた。

術後経過：術後21病日に留置したTドレーンより胆道造影を施行した。遺残結石を認めず、また、明らかな胆管分枝形態異常は認めなかった (Fig. 9)。術後経過は良好で現在外来通院で経過観察中である。

考 察

重複胆管は頻度の低い胆道形成異常である。1983年から2005年の期間で「重複胆管」を検索語

として医学中央雑誌およびその関連文献として検索しえた重複胆管の本邦報告例は自験例を含めて57例であった。また、左肝管から分岐した重複胆管内に結石を有した報告は認められなかった。

重複胆管は『2本の patency の保たれた胆管が別々に消化管に開口している先天奇形』と定義されているが、発生学的には将来胆管と肝管になっ

Fig. 5 A double bile duct was layed between the liver hilus and the lesser curvature of the stomach in the lesser omentum.

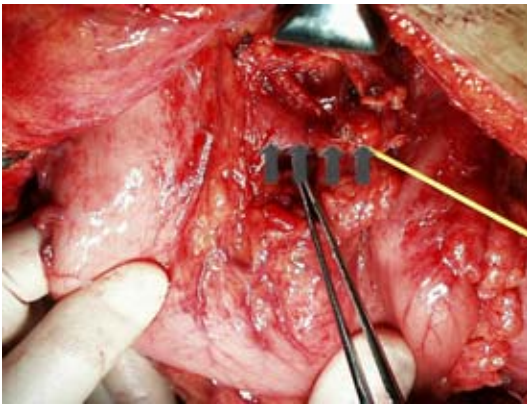


Fig. 6 Cholangiography in the operation revealed that a statue of bile duct with ectopic drainage into the body of the stomach.



ていく頭側肝窩 (pars hepatica) と、胆嚢および胆嚢管となるべき後側肝窩 (pars cystica) の発育段階での融合不全によってそれぞれ固有の draining route が残り、胆管の発生時期と胃・十二指腸の分離時期のずれによって固有の draining route の開口部が決定されることで起こると言われている¹⁾。

Fig. 7 Histopathological finding of the double bile duct showed bile duct epithelium with the smooth muscle revealed (HE stain) .

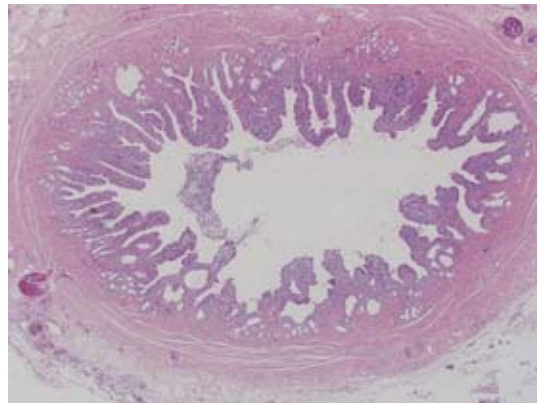
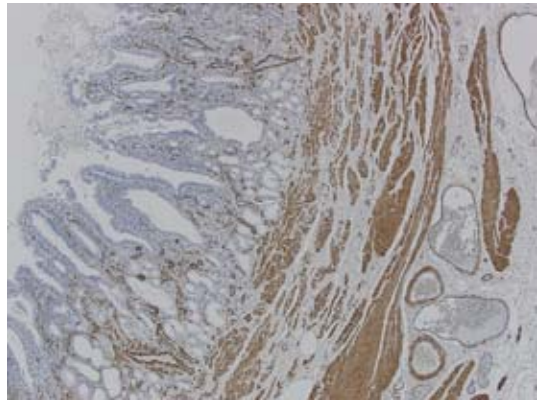


Fig. 8 Immunohistochemical stainings : The double bile duct was positive for α smooth muscle actin.



胆道の発生異常には副肝管がある。副肝管は発生学的には pars hepatica と pars cystica の交通の残存によるものと考えられており、『肝領域を支配する肝内肝管が肝実質から出て肝外を走行し総肝管、総胆管、胆嚢管、胆嚢などに合流する走行解剖学的変異』と定義される。副肝管は消化管に開口しない点で重複胆管とは鑑別される²⁾。

重複胆管の分類は1972年 Goorら³⁾により分類されたものを基に1981年寺尾ら⁴⁾、1988年齊藤

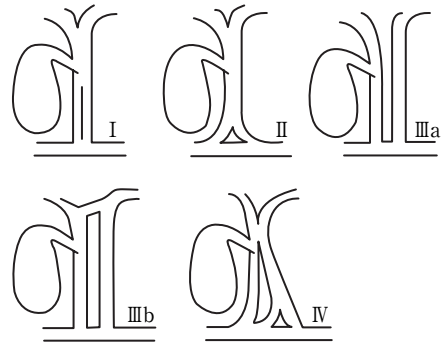
Fig. 9 Postoperative cholangiography showed that a calculus in the common bile duct and the double bile duct was removed.



ら⁵⁾による I. 中隔型, II. 分枝型, III. 分離型, IV. 混合型に分類され, この分類が一般的に用いられている (Fig. 10). 小山ら¹⁾による本邦報告 40 症例を分類すると I 型: 1 例, II 型: 6 例, IIIa 型: 0 例, IIIb 型: 22 例, IV 型: 3 例, 分類不能: 8 例であり IIIb 型が最も報告が多いとされており, 自験例も IIIb 型であった. 開口部位に関しては十二指腸が最も多く, ついで胃, さらにには臍管へ開口する例も報告されている⁶⁾.

自験例では術前に診断がつかず, 術中に重複胆管であることが判明したが, 重複胆管の報告例は自験例の様に術中に発見されているものがほとんどである. しかし, 画像診断の進歩に伴い, 健診で偶発的に発見される報告もある⁷⁾. 重複胆管の術前診断は, 重複胆管に特徴的な臨床症状は認めないものの, 上部消化管検査, ERCP, 3D-CT, MRCP などの検査所見を十分吟味することで診断が可能である. 特徴的な所見として上部消化管内視鏡検査では消化管に異所性に開口している開口部が確認できること, ERCP では異常陰影を認め, さらに消化管が造影されること, 3D-CT, MRCP では異常な管腔構造物が認められることがあげられる. 自験例では平成 16 年 12 月以前に

Fig. 10 Classification of double bile duct. I: septum type, II: bifid type, III: separation type, IV: mixed type.



特記すべき自覚症状は認めなかったが, 上部消化管内視鏡検査で胃に胆汁が流入してくる開口部があること, ERCP で総胆管内および異所性の胆管内に陰影欠損を認めたこと, 腹部 CT で異常な管腔構造物が存在したことなどの検査結果から術前に重複胆管と診断することは可能であったと考えられた.

重複胆管であると確定診断をつけるためには, 炎症などにより形成された瘻孔と鑑別をする必要がある. 胆管は解剖学的に粘膜, 平滑筋層, 漿膜下層, 漿膜 (または外膜) の 4 層からなる. 瘻孔との鑑別には, これらの組織学的に胆管に特徴的な構造が全長にわたり全周性に認められることが必要である. 自験例では切除標本全長にわたり, 組織学的に全周性の胆管上皮を認めた. また, 免疫組織学的には平滑筋組織に特異的に反応する α smooth muscle actin 染色に切除標本が全長にわたり染まったことから平滑筋の存在が示唆された. 以上より, 後天性の瘻孔ではなく先天性の重複胆管であると思われた.

重複胆管は通常の粘膜を持つ正常な胆管の構造であるが, 開口部に括約筋を欠いていることが特徴である⁸⁾. このため, 括約筋が存在しない異所性開口部から胆管内への消化管内容の逆流や胆管の感染により, 胆管内に結石が生成される可能性が

高いと報告されている⁸⁾。以上より、重複胆管の治療法は重複胆管を切除するとして報告が多く認められる。自験例でも総胆管および重複胆管内に結石を認めており、重複胆管を切除した。

重複胆管症例に悪性腫瘍が合併する報告があり、Kondoら⁹⁾は胃に開口する重複胆管症に胃癌が発生した2例を報告している。ほか、十二指腸開口例で十二指腸乳頭部癌、膵癌および膵管開口例で胆嚢癌の報告例がある¹⁰⁾¹¹⁾。胃に開口する重複胆管症は、胆汁の慢性胃粘膜刺激のため幽門腺様腺管が発生することから、胃癌発生リスクが高くなると考えられている。また、十二指腸および膵管に開口する場合は重複胆管に膵・胆管合流異常があるため胆管内に細胞障害性の膵液が逆流し、胆嚢内や胆管内にうっ滞することで発癌に至るとされている¹²⁾¹³⁾。自験例では上部内視鏡検査を行った際に開口部付近の胃粘膜に不整な像はなく、その他臓器にも悪性腫瘍の合併は認めていない。

重複胆管はまれな疾患であるが、画像診断の進歩に伴い術前診断が可能になってきている。したがって、胆道系疾患を診察する際には本症を含めた胆管系の発生異常の存在を念頭において診断および治療にあたる必要があると考えられた。

文 献

- 1) 小山祐康, 土岐文武, 西野隆義ほか: 重複胆管, 胆と膵 **23**: 733—736, 2002
- 2) 磯谷正敏, 山口晃弘, 渡邊芳夫ほか: 異所性胆管, 胆と膵 **23**: 737—742, 2002
- 3) Goor DA, Ebert PA: Anomalies of the biliary tree. Arch Surg **104**: 302—309, 1972
- 4) 寺尾直彦, 宮治 真, 片桐健二ほか: 胃に異所開口した重複胆管の1例. 胃と腸 **16**: 1239—1244, 1981
- 5) 斉藤如由, 中野 章, 荒瀬正信ほか: 左肝管の狭窄と分岐異常を伴った重複胆管症の1例. 日外会誌 **89**: 1296—1301, 1988
- 6) 太田宏信, 高橋澄雄, 武田康男ほか: 早期胆嚢癌を合併した重複胆管の1例. 日消誌 **94**: 62—67, 1997
- 7) 古川正愛, 渡辺千之, 山田博康ほか: 健診で発見された重複胆管の1例. Jpn Diag Imaging **24**: 762—765, 2004
- 8) 板野 聡, 寺田紀彦, 橋本 修: 重複胆管の1症例. 日消内視鏡会誌 **30**: 606—611, 1988
- 9) Kondo K, Yokoyama I, Yokoyama Y et al: Two cases of gastric cancer bearing double choledochus with ectopic drainage into the stomach. Cancer **57**: 138—141, 1986
- 10) 渡辺 透, 中田浩一, 池田真浩ほか: 膵胆管合流異常を伴った重複胆管に併発した胆嚢癌の1例. 胆と膵 **19**: 319—323, 1998
- 11) 十倉正朗, 川崎 繁, 上林孝豊ほか: 胆嚢癌を合併し, 重複胆管様所見を呈した膵胆管合流異常の1例. 胆と膵 **20**: 81—85, 1999
- 12) 松田昌幸, 兵庫秀幸, 木田 肇ほか: 膵管胆道合流異常を伴った重複胆管の1例. 日消誌 **92**: 1794—1798, 1995
- 13) 小山祐康, 渡辺伸一郎, 土岐文武ほか: 希有な形態を示した重複胆管の1例. 胆と膵 **21**: 94—95, 2000

A Case of Ectopic Bile Duct Stone with Ectopic Drainage into the Body of the Stomach

Takafumi Tamura, Yutaka Mizuno, Naoya Sawa, Michitaka Okamoto,
Takayuki Terasawa, Daiji Iwami, Tatsuro Hasegawa, Tatsuyuki Ueno,
Kazuaki Miura and Yousei Katayama*

Department of Surgery and Department of Pathology*, Hachinohe City Hospital

We report a rare case of double bile duct with calculus. A 71-year-old woman admitted for abdominal pain was found in abdominal ultrasonography and CT to have a common bile duct stone. Upper gastrointestinal endoscopy showed that the bile flowed into the upper body of the stomach. ERCP delineated defects in the common bile duct and the statue of ectopic bile duct. In operative findings, a statue of ectopic bile duct lay between the liver hilus and the lesser curvature of the stomach in the lesser omentum. Cholangiography in the operation revealed that double bile duct diverged from left hepatic duct. Calculus occurred in a common bile duct and the ectopic bile duct, necessitating cholecystectomy, choledochotomy, and ectopic bile duct resection with partial gastrectomy. Histopathological finding of the double bile duct showed that the double bile duct was not aquired duct but also congenital duct. A double bile duct is rare, and a case in which calculus is recognized in the ectopic bile duct is very rare.

Key words : double bile duct, gall bladder stone, bile duct stone

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 40 : 444—449, 2007]

Reprint requests : Takafumi Tamura Department of Surgery, Hachinohe City Hospital
1 Bishamondaira, Tamukai, Hachinohe, 031-8555 JAPAN

Accepted : September 27, 2006