

症例報告

急性胆嚢炎を発症した胆嚢異所性腺の1例

さいたま市立病院外科

岡本 信彦 山藤 和夫 松井 淳一 朝見 淳規
竹島 薫 林 憲孝 馬場 秀雄

患者は78歳の女性で、上腹部痛を自覚し他院を受診したが改善せず、当院内科に紹介受診となった。腹部超音波検査上、胆嚢の著明な腫大、胆嚢壁肥厚を認め、急性胆嚢炎の疑いで入院となった。炎症反応は高値であったが、肝胆道系酵素の上昇、黄疸は認めなかった。入院当日に経皮経肝胆嚢ドレナージュチューブを挿入した。チューブ造影検査では、胆嚢頸部に狭窄を認め、胆嚢腫瘍の可能性も否定できなかったが、腹部超音波、超音波内視鏡検査、腹部CTでは胆嚢頸部の腫瘍性病変は認めなかった。胆汁細胞診はclass IIまたはIIIであった。胆嚢腫瘍または腺筋腫症の疑いで腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した。摘出標本では、胆嚢全体に壁肥厚を認め、胆嚢頸部胆嚢管移行部での狭窄を認めるが、粘膜病変は認めなかった。病理組織学的には狭窄部に一致して漿膜下層に腺房と導管を認め、Heinrich II型の異所性腺と診断された。

はじめに

急性胆嚢炎の原因としては多くの症例で胆嚢結石の存在が関与していると考えられる。また、無石胆嚢炎で発症した胆嚢炎の中に胆嚢頸部または胆嚢管原発症によるものも散見される^{1)~3)}。今回、我々は急性胆嚢炎で発症し、胆嚢頸部胆嚢管移行部狭窄を認めた胆嚢異所性腺の症例を経験したので報告する。

症 例

患者：78歳、女性

主訴：上腹部痛

既往歴：48歳時に左乳癌手術。

現病歴：2006年10月中旬に上腹部痛を自覚し近医を受診した。胃粘膜保護剤を処方され帰宅するも改善せず、当院内科へ紹介受診となった。腹部超音波検査上、胆嚢の著明な腫大、胆嚢壁の肥厚を認め、急性胆嚢炎の疑いで入院となった。

来院時検査所見：白血球29,270/ μ l, CRP 23.79 mg/dlと炎症反応高値であったが、肝胆道系酵素の上昇、黄疸は認めなかった。CEA 1.5ng/ml,

CA19-9 9.2U/mlと正常範囲内であった。

入院後経過：入院当日に経皮経肝胆嚢ドレナージュ(percutaneous transhepatic gallbladder drainage; 以下, PTGBD)チューブを挿入し、黒色胆汁の流出を認めた。超音波検査上、結石の存在は否定的であった。PTGBDチューブ挿入後、胆嚢炎は速やかに改善したが、チューブ造影検査を行ったところ、胆嚢管から胆嚢頸部移行部の狭窄所見を認めたため、胆嚢癌を疑い精査を行った。

腹部造影CT：胆嚢壁は全体に肥厚、濃染し、周囲に少量の液体貯留を伴っていた。頸部から胆嚢管に付近に腫瘤を疑わせる所見は認めなかった(Fig. 1)。肝臓に特記すべき異常所見を認めなかった。

Drip infusion cholangiography (以下, DIC)-CT：肝内胆管、総胆管の拡張を認めず、結石、腫瘍を疑う陰影欠損は認めなかった。胆嚢管から胆嚢頸部移行部での狭窄を認めた。PTGBDチューブクランプ下でも胆嚢内への造影剤の流入を認めた。

超音波内視鏡検査：全体的に胆嚢壁の肥厚を認めるが、頸部に一致した腫瘍性病変や結石を認めなかった(Fig. 2)。

<2008年12月17日受理>別刷請求先：岡本 信彦
〒336-8522 さいたま市緑区三室 2460 さいたま市立病院外科

Fig. 1 Abdominal contrast enhanced CT showed wall thickening of the gallbladder, but there was no mass lesion in the gallbladder neck (arrows).

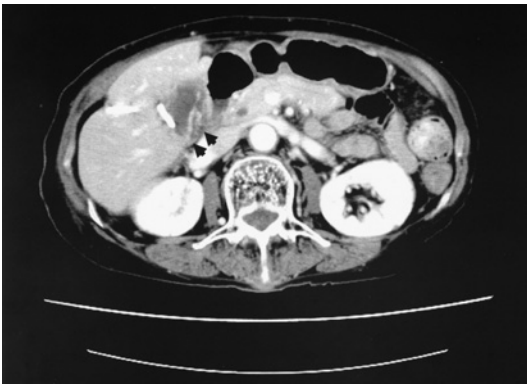
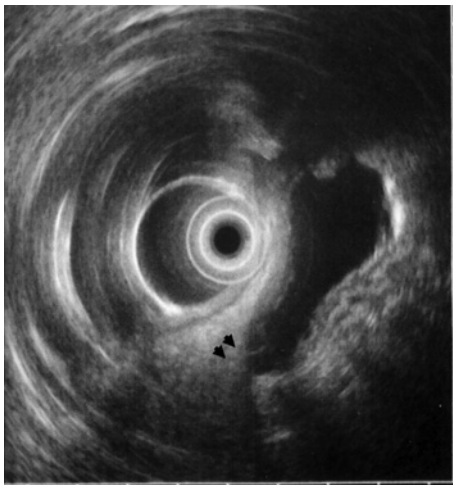


Fig. 2 Endoscopic ultrasonography showed wall thickening of the gallbladder, but no tumor was observed in the gallbladder neck (arrows).

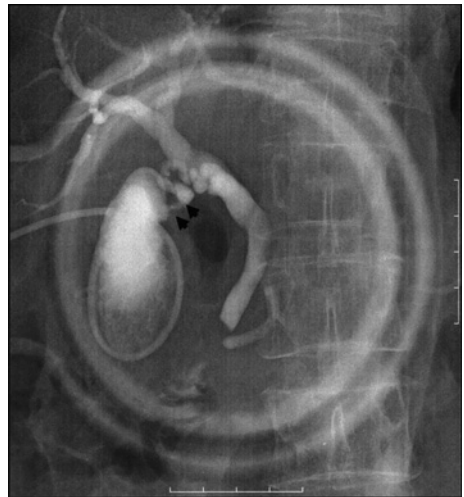


PTGBD チューブ造影検査：DIC-CTと同様に胆嚢管と頸部の移行部での狭窄を認めた(Fig. 3)。

胆汁細胞診：胆嚢内胆汁の細胞診は class II または III であった。

以上より、胆嚢管から胆嚢頸部への移行部原発の胆嚢癌または胆嚢腺筋腫症による胆嚢管狭窄で急性胆嚢炎を来したものと判断し、12月中旬に手術を予定した。悪性を疑うことより開腹胆嚢摘出術を勧めたが、患者の希望により腹腔鏡下に手術を行った。

Fig. 3 Direct cholangiography through PTGBD tube showed stenosis in the gallbladder neck (arrows).



手術所見：腹腔鏡下に観察すると十二指腸、大網が胆嚢に炎症性に癒着していた。これらを鈍的に剥離し、胆嚢頸部を露出した。Calot 三角は中等度の炎症、癒着を認めた。12c リンパ節に腫大を認めず、胆嚢管から頸部の移行部も漿膜側に腫瘍性変化を思わせる所見は認めなかった。逆行性胆嚢摘出術を施行した。胆嚢管は胆嚢頸部移行部から約 1cm 離れて切離した。

摘出標本肉眼検査所見：胆嚢全体に壁肥厚を認めた。胆嚢頸部での狭窄を認め、3mm 大の粘膜下腫瘍様隆起を認めるが、粘膜病変は認めなかった(Fig. 4)。

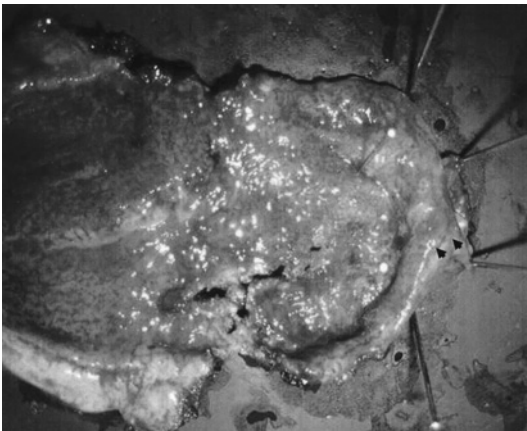
病理組織学的検査所見：迅速病理組織学的検査に提出したところ、狭窄部に一致して漿膜下層に腺房と導管を認めた(Fig. 5)。永久標本の病理組織学的検査では慢性胆嚢炎と異所性腺の診断であった。胆嚢粘膜上皮に高円柱状の所見を認めるが、反応性のものと考えられ、上皮の過形成や異形成は認めなかった。

術後経過：経過良好で、第 5 病日に退院した。

考 察

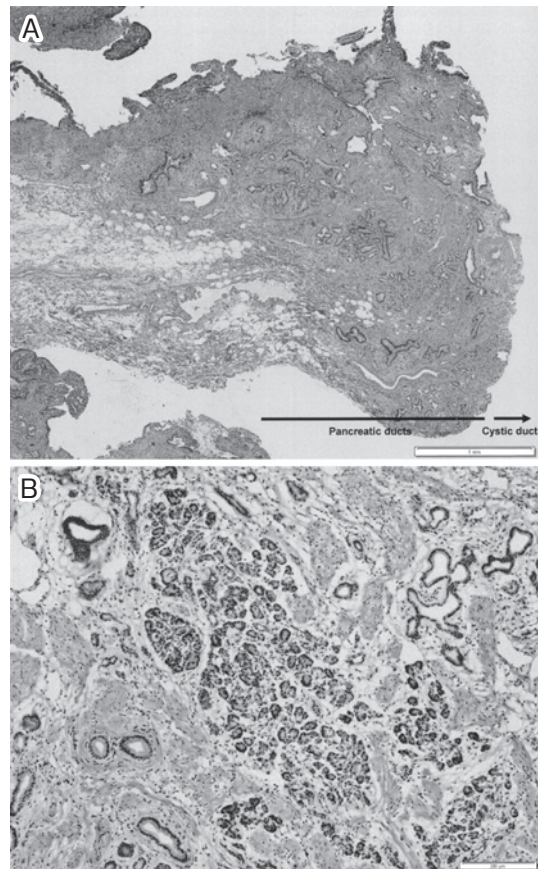
異所性腺組織は、本来の腺臓と連続性のない異所性に存在する腺組織と定義され、迷入腺とも呼ばれる。Klob が 1859 年に胃と空腸の異所性腺組

Fig. 4 Macroscopic findings of resected specimen revealed stenosis in the junction of gallbladder and cystic duct without mucosal lesion (arrows).



織を組織学的に証明したのが最初である⁴⁾。Pearson⁵⁾の集計によると、後発部位は、十二指腸(30%)、胃(25%)、空腸(15%)、Meckel憩室(6%)、回腸(3%)などであり、胆嚢、総胆管、脾臓などさまざまな腹腔内臓器で確認されている。Barbosaら⁶⁾の471例の集計によると胆嚢の報告は6例で、異所性膵全体の1.3%と少数である。PubMedで1981年から2008年1月までに「heterotopic pancreas」と「gallbladder」をキーワードに原著論文を検索したところ5例の報告を認めた。本邦報告例については、JMEDPlusで同期間に「迷入膵、異所性膵」and「胆嚢」をキーワードに検索したところ11例の症例報告^{7)~17)}があり、その臨床的特徴をTable 1にまとめた。術前に超音波で胆嚢壁肥厚を指摘されていたものは9例あったが、術前診断は重複を含め、胆石症8例、胆嚢腺筋腫症4例、急性胆嚢炎2例、慢性胆嚢炎2例、胆嚢腫瘍疑い2例、胆嚢ポリープ2例であった。腫瘍を疑ったのは、胆嚢管狭窄を来した自験例と、超音波検査で胆嚢体部に壁肥厚を認めた1例⁹⁾であった。この2例はいずれも造影CT上は腫瘤を疑う所見を認めておらず、胆嚢異所性膵の超音波検査、CTでの診断は困難と考えられた。異所性膵組織による特徴的な症状はなく、大部分の症例が胆石発作と思われる右季肋部痛や無症状である。

Fig. 5 Microscopic examination of resected specimens showed pancreatic ducts (A, B) and acinar cells (B) in the gallbladder neck (Heinrich type II).



うち、急性胆嚢炎で発症したものは2例のみで、榊田ら¹²⁾の報告例は結石を有しており、無石胆嚢炎として発症したのは自験例のみであった。

Heinrich¹⁸⁾は異所性膵組織を膵組織の構成成分により次の3型に分類した。Heinrich I型：腺房、導管、ランゲルハンス島よりなるもの、Heinrich II型：腺房と導管よりなるもの、Heinrich III型：腺房のみからなるものであり、本邦報告の12例では、I型が5例でII型が7例であった。自験例では病理組織学的に胆嚢管狭窄部に一致した漿膜下層に腺房組織と導管を認め、Heinrich II型と診断した。腺房と導管を有する異所性膵組織では、外分泌能を有するものがあり⁵⁾⁶⁾、胆嚢内の膵液の存在が腺筋症や上皮の過形成の原因となっている可能

Table 1 Reported cases of heterotopic pancreas of the gallbladder in Japan

Author (Year)	Age	Sex	Diagnosis	Stone	Operation	Location	Heinrich	Size (mm)
Takano (1986) ⁷⁾	54	F	Cholelithiasis	(+)	OC	Body	1	2*1
Sakuraba (1989) ⁸⁾	31	F	Cholelithiasis	(+)	OC	Neck (duct)	2	1
Nakagawa (1991) ⁹⁾	57	M	Tumor	(+)	OC	Body	1	5*2*2
Asada (1991) ¹⁰⁾	49	M	Chronic cholecystitis	(-)	OC	Neck	1	6*5*4 5*4*3
Narita (1995) ¹¹⁾	48	F	Adenomyomatosis	(+)	LC	Neck	2	2.5*1
Kushida (1996) ¹²⁾	52	F	Acute cholecystitis	(+)	OC	Neck (duct)	2	1
Iiyama (1998) ¹³⁾	68	F	Polyp	(-)	OC	Neck	1	5*5
Murakami (1999) ¹⁴⁾	49	F	Polyp	(-)	LC	ND	2	5
Niihama (2003) ¹⁵⁾	27	M	Cholelithiasis	(+)	LC	Body Neck	2	0.2
Enomoto (2003) ¹⁶⁾	67	F	Chronic cholecystitis	(+)	LC → OC	Neck	2	2*2
Komura (2007) ¹⁷⁾	58	M	Cholelithiasis	(+)	LC	Body	1	7*3
Present case	78	F	Acute cholecystitis, Tumor	(-)	LC	Neck (duct)	2	3*3

M : male, F : female, OC : open cholecystectomy, LC : laparoscopic cholecystectomy, ND : not described

性がある。また、膵胆管合流異常症では胆道癌発生も知られている。当院における過去20年間の膵胆管合流異常症42例中7例(16.7%)で胆嚢癌が発生していることを考えると、異所性膵組織の存在する胆嚢では膵液の胆嚢内分泌の可能性もあるため、切除胆嚢標本を全割し微小癌の有無を検索すべきである。本邦報告例では、術前、術中に胆汁中アマラーゼを測定した記載はない。自験例では、PTGBDチューブが挿入されており、胆嚢内胆汁採取は可能であったが、細胞診には複数回提出したもののアマラーゼ値測定は行っておらず、反省すべき点であった。

胆嚢異所性膵の治療は、前述の通りすべて術前診断がついていないため、全例において胆嚢摘出術が施行されている。近年の腹腔鏡下胆嚢摘出術の普及により、報告例でも4例に腹腔鏡下手術が施行された。自験例では、胆嚢腫瘍の疑いも否定できないため、開腹手術も考慮したが、患者の強い希望もあり、腹腔鏡下手術を行った。胆嚢癌や腫瘍が否定できない場合の腹腔鏡下手術の適応に関しては議論のあるところだが、当院においては、深達度が固有筋層以深と思われる胆嚢癌疑いの症例は原則開腹手術で開始し、ポリープや腺筋症と腫瘍との鑑別ができない症例や、胆管非拡張の膵胆管合流異常症で、胆嚢に腫瘍性病変を認めないものは、腹腔鏡下手術の適応としている。

急性胆嚢炎の治療としては、急性胆嚢炎、胆管

炎の診療ガイドライン¹⁹⁾によれば、診断確定後72~96時間以内の胆嚢摘出術を勧め、初期治療に反応せず何らかの理由で手術を行えない場合、経皮的ドレナージの適応があるとされているが、実際には早期手術は困難な場合が多い。当院の2005年1月から2007年12月までの急性胆嚢炎96例において、87例で胆嚢ドレナージが行われており、発症後96時間以内の準緊急手術を行ったものは4例のみで、5日から14日が20例、15日から28日が52例、29日以降に行ったものが24例であった。また、無石胆嚢炎では有石胆嚢炎と比較して重症化しやすいため、早期手術を勧める反面、基礎疾患として悪性腫瘍の可能性もあり慎重な術前の判断が必要となる。本症例も、来院時の炎症所見が高度であり、まずPTGBDチューブ挿入により炎症の沈静化を図り待機的手術を施行した。

文 献

- 1) 福田喜一：胆嚢管原発癌の臨床的・病理組織学的特徴—胆嚢原発癌および胆管癌と対比して—。胆道 4 : 417—429, 1990
- 2) 窪田公一, 熊沢健一, 大石俊典ほか：急性胆嚢炎を合併した胆嚢癌症例の検討。日臨外医会誌 56 : 1662—1666, 1995
- 3) 諸橋 一, 豊木嘉一, 袴田健一ほか：胆嚢管原発の腺内分泌細胞癌の1例。胆道 19 : 489—494, 2005
- 4) Branch CD, Gross RE : Aberrant pancreatic tissue in the gastro-intestinal tract. Arch Surg 31 : 200—224, 1935
- 5) Pearson S : Aberrant pancreas. Review of the lit-

- erature and report of which produced common and pancreatic duct obstruction. Arch Surg **63** : 168—184, 1951
- 6) Barbosa JJ, Dockerty MB, Waugh JM : Pancreatic heterotopia. Review of the literature and report of 41 authenticated surgical cases, of which 25 were clinically significant. Surg Gynecol Obstet **82** : 527—542, 1946
 - 7) 高野 敏, 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
 - 8) 桜庭 清, 添野武彦, 伊藤誠司ほか : 胆嚢に認められた異所性膵組織の1例. 胆道 **3** : 95—100, 1989
 - 9) 中川国利, 土屋 誉, 桃野 哲ほか : 胆嚢壁内異所性膵組織の1例. 臨外 **46** : 1529—1532, 1991
 - 10) 浅田康行, 山村浩然, 三浦将司ほか : Adenomyomatosisを合併した胆嚢異所性膵の1例. 外科診療 **35** : 91—95, 1993
 - 11) 成田和弘, 村上雅彦, 鈴木和雄ほか : 胆嚢迷入膵の1例. 胆と膵 **16** : 789—792, 1995
 - 12) 櫛田俊明, 滝 真二, 喜多良孝ほか : 胆嚢の異所性膵組織の1例. 日臨外医会誌 **57** : 2527—2531, 1996
 - 13) 飯山 仁, 中根恭司, 井上健太郎ほか : 早期胃癌に併存した胆嚢異所性膵の1例. 日消外会誌 **31** : 2350—2353, 1998
 - 14) Murakami M, Tsutsumi Y : Aberrant pancreatic tissue accompanied by heterotopic gastric mucosa in the gall-bladder. Pathol Int **49** : 580—582, 1999
 - 15) 新居浜高宏, 武元浩新, 谷口仁章ほか : 幽門腺化生を伴った胆嚢迷入膵の1例. 胆と膵 **24** : 543—547, 2003
 - 16) 榎本正統, 加藤孝一郎, 河野守男ほか : 胆石症に合併した胆嚢内異所性膵組織の1例. 日臨外会誌 **64** : 3121—3124, 2003
 - 17) 小村俊博, 中川国利, 村上泰介 : 胆嚢内異所性膵組織の1例. 臨外 **62** : 559—562, 2007
 - 18) Heinrich H : Ein Beitrag zur Histologie des zugehörigen Pankreas. Virchow Arch Path Anat **198** : 392—401, 1909
 - 19) 急性胆道炎の治療ガイドライン作成出版委員会編 : 科学的根拠に基づく急性胆管炎・胆嚢炎の診療ガイドライン. 第1版. 医学図書出版, 東京, 2005, p131—142

A Case of Acute Cholecystitis Caused by Heterotopic Pancreatic Tissue in the Gallbladder

Nobuhiko Okamoto, Kazuo Yamafuji, Junichi Matsui, Atsunori Asami,
Kaoru Takeshima, Noritaka Hayashi and Hideo Baba
Department of Surgery, Saitama Municipal Hospital

A 78-year-old woman admitted for upper abdominal pain and showing increased inflammation despite transaminases, alkaline phosphatase, and total bilirubin within normal limits was found in. Ultrasonography to have marked swelling and wall thickening of the gallbladder diagnosed as acute cholecystitis necessitating percutaneous transhepatic gallbladder drainage (PTGBD). Direct cholangiography through the PTGBD tube showed stenosis in the gallbladder neck but computed tomography and endoscopic ultrasonography showed no abnormality. Bile cytology through the PTGBD tube was negative. Laparoscopic cholecystectomy yielded macroscopic findings of stenosis in the gallbladder junction and cystic duct without any mucosal lesion. Pathohistological examination of the excised specimen showed heterotopic Heinrich II type pancreatic tissue.

Key words : heterotopic pancreas tissue, acute cholecystitis, laparoscopic cholecystectomy

[Jpn J Gastroenterol Surg **42** : 505—509, 2009]

Reprint requests : Nobuhiko Okamoto Department of Surgery, Saitama Municipal Hospital
2460 Mimuro, Midori-ku, Saitama, 336-8522 JAPAN

Accepted : December 17, 2008