症例報告

術中内視鏡併用ランデブー法を用いて開窓しえた総胆管瘤の1例

間野 洋平¹⁾ 副島 雄二¹⁾ 本村 貴志¹⁾ 中西 良太¹⁾
藤中 良彦¹⁾ 西田康二郎¹⁾ 高橋 郁雄¹⁾ 西崎 隆¹⁾

¹⁾松山赤十字病院外科

症例は56歳の男性で、総胆管結石を伴った総胆管瘤と診断された。ERCPと内視鏡的乳頭切開術（endoscopic sphincterotomy；以下、ESTと略記）による採石と開窓を試みるも総胆管瘤から胆管へのカニュレーションが困難であった。開腹下に総胆管切石と、術中ERCPによるランデブー法を用いたESTにより瘤の開窓を行った。総胆管瘤の治療は、本症例のように内視鏡的治療が困難な症例では、開腹下に術中内視鏡を併用したESTを行うことも有用であると考えられた。

キーワード：ERCP，総胆管瘤，先天性胆道拡張症 III 型

はじめに

総胆管瘤はまれな疾患であり¹⁾，先天性胆道拡張症のAlonso-Lej分類・戸谷分類ではIII型に分類される²⁾³⁾。治療方針は内視鏡的開窓術が行われる。今回，我々は内視鏡的治療が困難な総胆管瘤症例に対して，術中内視鏡にて開窓しえた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：56歳，男性

主訴：繰り返す腹痛

既往歴：生下時；水頭症，精神発達遅滞，53歳；腰部脊柱管狭窄症，55歳；下肢静脈血栓症

家族歴：特記事項なし。

現病歴：53歳頃より，1年に1回程度，急性膵炎にて他院で入院加療を繰り返していた。56歳時に重症急性膵炎（予後因子3点，造影CT Grade 3）の診断で，当院肝胆膵センターにて入院加療された。繰り返す膵炎原因検索として上部消化管内視鏡検査・超音波内視鏡検査を施行したところ，十二指腸乳頭部に嚢胞性病変と下部胆管に総胆管結石を認め，繰り返す膵炎の原因と考えられた。ERCPにて嚢胞性病変から造影を行ったところ，総胆管と主膵管が造影されたため，嚢胞性病変は総胆管瘤であると診断した。内視鏡的乳頭筋切開術（endoscopic sphincterotomy；以下，ESTと略記）にて採石を試みるも，総胆管瘤から総胆管へのdeep cannulationができず，採石はできなかったため，外科的加療目的に当科紹介となった。

身体所見：身長161cm，体重59kg，貧血や黄疸を認めず，腹部所見では心窩部に軽度圧痛を認めるのみであった。

血液検査所見：貧血や炎症所見を認めず，生化学検査に異常なく，腫瘍マーカーの上昇を認めなかった。

腹部CT所見：胆嚢内に胆泥・結石の貯留を認めるが，明らかな総胆管と肝内胆管の拡張は認めず，CT

では総胆管瘤は指摘できなかった (Fig. 1A).

MRCP 所見：十二指腸乳頭部に約 15 mm 大の嚢胞性病変を認めた。胆嚢内・下部胆管に結石を疑う陰影欠損を認めた。肝内胆管と主膵管の拡張は認めなかった (Fig. 1B)。

ERCP 所見：十二指腸乳頭部からその口側にかけて 2 cm 大の粘膜下腫瘍様の隆起を認めた (Fig. 1C)。乳頭部よりカニューレションし造影したところ、乳頭部口側に 2 cm 大の瘤状に造影される構造を認め、瘤を介して主膵管とやや拡張した総胆管が造影された (Fig. 1D)。下部胆管は結石による透亮像を認めたが、ガイドワイヤーを瘤内から総胆管まで進めることができず、ERCP による総胆管結石の採石は不可能であると判断された。

内視鏡的に開窓できない総胆管瘤、内視鏡的に採石できない総胆管結石に対し、開腹手術による総胆管切石術、術中内視鏡併用下の総胆管瘤開窓を計画した。

手術所見：上腹部正中切開にて開腹した。まず、型通り胆嚢を摘出した。次に中部胆管に 1 cm の縦切開を加え、下部胆管の結石を可及的に摘出した。胆道鏡を用いてその他に総胆管内に結石がないことを確認

Fig. 1 CT scan showed a dilated gallbladder (white arrowhead) but the intrahepatic bile ducts were not dilated (A). MRCP showed a 15 mm cystic lesion at the papilla (white arrowhead) and the intrahepatic bile ducts were not dilated (B). ERCP showed a submucosal tumor-like lesion (white arrowheads) in the oral side of the papilla (black arrowhead) (C). Contrast study revealed a cystic lesion (yellow arrowhead) in the wall of the duodenum followed by the bile duct (green arrowhead) and the pancreatic duct (blue arrowhead) (D).

Fig. 2 Intraoperative cholangiography revealed the positional relationship among the choledochocoele, the bile duct, and the pancreatic duct (A). A guide wire was inserted from the bile duct and passed into the duodenum through the choledochocoele, and caught by intraoperative endoscopy (B).

Fig. 3 The “rendezvous” endoscopic sphincterotomy of the papilla and concomitant fenestration of the choledochocoele were performed.

した。胆道鏡にて下部胆管を観察したところ、瘤への流入孔は狭小化していた。Cアームを用いた術中透視下に胆管内に造影剤を注入し、瘤の形態と総胆管・十二指腸との位置関係を確認した (Fig. 2A)。0.035 mmのガイドワイヤーを中部胆管から挿入し、瘤を通して十二指腸内までガイドワイヤーを進めた。術中内視鏡にてガイドワイヤーを把持し、ガイドワイヤーに沿って十二指腸側から総胆管内までカニュレーションすることに成功した (ランデブー法, Fig. 2B)。電気メスを用いて、ESTにより総胆管瘤と胆管開口部の開窓を行った (Fig. 3)。開窓後に総胆管側から造影剤を注入したところ、瘤の流入出路の狭小化は解消され、スムーズに十二指腸まで造影された (Fig. 4)。

術後に grade 1 の創感染を認めたものの、経過良好で術後 28 日目に退院となった。術後 1 年 6 か月の時点で、結石の再発や膵炎の再燃は認めず経過している。

Fig. 4 The choledochocoele disappeared and there was no biliary stricture in the intraoperative cholangiography.

考 察

総胆管瘤は十二指腸壁内の嚢状の拡張とされ、発症年齢が高く、膵胆管合流異常を有さないなど、他の胆道拡張症とはやや異なった特徴を示す⁴⁾。その成因は解明されていないが、先天性の嚢腫または憩室が下部胆管に形成されたとする説⁵⁾や、Oddi 括約筋機能不全のために胆管末端部の壁の脆弱な部分が嚢状に拡張したとする説⁶⁾が有力視されている。本症例は、年齢から考察するに後者である可能性が示唆される。

Scholz ら⁵⁾は瘤と総胆管、主膵管の関係から A と B の二つに分類したが (Fig. 5)、この分類では分類できない総胆管瘤の報告も見られるようになったため、鍵山ら⁷⁾は 3 分類を加えて、A~E の 5 型の分類を報告した (Fig. 5)。また、神澤ら⁸⁾は瘤の位置や共通管の形成の有無から、共通管拡張型、胆管末端部拡張・共通管形成型、胆管末端部拡張・共通管非形成型の三つに分類し (Fig. 6)、さらに、Horaguchi ら⁹⁾は膵液の胆管への逆流の有無から、膵管が総胆管瘤とは独立して十二指腸に開口する I 型 (Fig. 7A, B) と、瘤に開口する II 型とに分類した (Fig. 7C)。本症例は、共通管の部分に瘤を形成し、十二指腸へは単孔で開口しており、Scholz の A 型、鍵山の A 型、神澤の共通管拡張型、Horaguchi の II 型に相当する。このタイプの総胆管瘤では、Oddi 括約筋が圧排、脆弱化していると考えられ、膵胆管合流異常に類似した胆汁と膵液の停滞や逆流が起こりうるといわれている⁸⁾。本症例においても、胆泥などによる瘤内の膵液うっ滞や膵管への胆汁の逆流により膵炎を繰り返し、胆管への膵液の逆流が胆石症の原因であったと考えられた。

総胆管瘤では瘤内の胆汁鬱滞が胆管炎や膵炎の原因と考えられ、瘤の開窓がまず選択されるべき治療法

Fig. 5 Classification of choledochocoele reported by Scholz et al. (A, B) and Kagiya et al. (A-E). C, choledochocoele; CBD, common bile duct; D, duodenum; O, orifice; PD, pancreatic duct.

と思われる¹⁰⁾。治療法には内視鏡を用いたESTが第一選択であるが、本症例のように、総胆管へのカニュレーションが困難な症例も存在する。堤ら¹¹⁾は、総胆管結石を合併した総胆管へのカニュレーションが困難な総胆管瘤に対し、瘤をプレカットすることで開放しカニュレーションを可能にした症例を報告した。本症例に対しては、瘤が15 mmと大きめであったため、内視鏡による瘤のプレカットは行わず外科紹介となった。内視鏡的治療が不可能な症例に対しては外科的な治療が必要となる。外科的治療には経十二指腸的乳頭形成術などが考えられる。

本症例では、下部胆管に結石を伴っており、採石と総胆管に対するESTが必要と考えられたが、瘤から胆管へのカニュレーションが困難であったため、開腹による総胆管切石術と術中内視鏡を併用したランデブー法によるESTを行うことで、安全かつ確実に瘤と胆管の開放を行うことができた。EST後に瘤は消失し、造影剤の流出も良好となり、術後も胆管炎や膵炎の再燃は認めていない。さらには、より低侵襲である腹腔鏡を用いた方法も考えられたが、現状では技術的にやや困難であり、今後の課題である。

先天性胆道拡張症では、膵胆管合流異常を有することにより、胆道癌の発生頻度が高くなることが知られているが⁹⁾¹²⁾¹³⁾、総胆管瘤と発癌との関連は、症例数が少ないためいまだはっきりしていないのが現状である。小田ら¹⁰⁾の5例の報告ではEST後の長期経過観察後に胆道癌を発症した症例は認められなかった。同様に、Zieglerら¹⁴⁾が後ろ向きに総胆管瘤の症例を検討した報告では、28例の総胆管瘤のうち22例にEST

が施行され、6例に外科的切除が施行されたが、術後に胆道癌が発症した症例は確認されなかった。一方、1950年から2014年12月までのPubMedで「choledochocoele」と「cancer」、1977年から2014年12月までの医学中央雑誌で「総胆管瘤」と「癌」あるいは「choledochocoele」と「癌」をキーワードとして文献検索をした結果、これまでに瘤内癌や胆嚢癌、乳頭部癌を合併したという報告は22例であった。本症例のように共通管が拡張しているタイプでは、胆汁と膵液の鬱滞や、胆管への膵液の逆流が起きる可能性があり、それが癌化の原因と考えられる^{15)~19)}。瘤を開窓することで癌化のリスクは減少すると考えられるが、治療までの慢性的な刺激による癌化の可能性も否定できないため、EST後も長期の経過観察が必要と思われる¹⁰⁾²⁰⁾。

開腹し用手にてガイドすることで安全かつ確実にESTを行うことができ、ESTによる治療が不成功の場合は、治療選択肢の一つとして考慮すべき方法と考えられた。

利益相反：なし

文献

- 1) Yamaguchi M. Congenital choledochal cyst. Analysis of 1,433 patients in the Japanese literature. *Am J Surg.* 1980 Nov; 140(5):653-7.
- 2) Alonso-Lej F, Rever WB Jr, Pessagno DJ. Congenital choledochal cyst, with a report of 2, and an analysis of 94, cases. *Int Abstr Surg.* 1959 Jan;108(1):1-30.
- 3) Todani T, Watanabe Y, Narusue M, Tabuchi K, Okajima K. Congenital bile duct cysts: classification, operative procedures, and review of thirty-seven cases including cancer arising from choledochal cyst. *Am J Surg.* 1977 Aug;134(2):263-9.
- 4) Kagiya S, Okazaki K, Yamamoto Y, Yamamoto Y. Anatomic variants of choledochocoele and manometric measurements of pressure in the cele and the orifice zone. *Am J Gastroenterol.* 1987 Jul;82(7):641-9.
- 5) Scholz FJ, Carrera GF, Larsen CR. The choledochocoele: correlation of radiological, clinical and pathological findings. *Radiology.* 1976 Jan;118(1):25-8.
- 6) Schimpl G, Sauer H, Goriupp U, Becker H. Choledochocoele: importance of histological evaluation. *J Pediatr Surg.* 1993 Dec; 28(12):1562-5.
- 7) 鍵山 惣一, 岡崎 和一, 山本 泰朗, 森田 雅範, 坂本 芳也, 田村 智, ほか. Choledochocoele の 4 症例—付, 本邦報告 20 症例の文献的考察—. *日本消化器内視鏡学会雑誌.* 1986;28(8):1895-901.
- 8) 神澤 輝実, 屠聿 揚, 江川 直人, 石渡 淳一, 岡本 篤武, 松川 昌勝. Choledochocoele の症例検討—形態分類と合併症を中心に—. *胆道.* 2001;15(2):104-10.
- 9) Horaguchi J, Fujita N, Kobayashi G, Noda Y, Ito K, Takasawa O. Clinical study of choledochocoele: is it a risk factor for biliary malignancies? *J Gastroenterol.* 2005 Apr;40(4):396-401.
- 10) 小田 齊, 中村 光成, 植木 敏幸, 佐田 正之, 大塚 隆生, 川本 雅彦, ほか. Choledochocoele に対する内視鏡的乳頭括約筋切開術の長期予後の検討. *臨床外科.* 2003 May;64(5):1065-70.
- 11) 堤 康一郎, 河本 博文, 原田 亮, 藤井 雅邦, 中西 崇, 水野 修, ほか. 急性膵炎を契機に診断された総胆管結石合併 choledochocoele の 1 例. *胆道.* 2007;21(5):670-6.
- 12) Todani T, Tabuchi K, Watanabe Y, Kobayashi T. Carcinoma arising in the wall of congenital bile duct cysts. *Cancer.* 1979 Sep; 44(3):1134-41.
- 13) Chijiwa K, Kimura H, Tanaka M. Malignant potential of the gallbladder in patients with anomalous pancreaticobiliary ductal junction. The difference in risk between patients with and without choledochal cyst. *Int Surg.* 1995 Jan-Mar;80(1):61-4.
- 14) Ziegler KM, Pitt HA, Zyromski NJ, Chauhan A, Sherman S, Moffatt D, et al. Choledochocoeles: are they choledochal cysts? *Ann Surg.* 2010 Oct;252(4):683-90.
- 15) Ozawa K, Yamada T, Matumoto Y, Tobe R. Carcinoma arising in a choledochocoele. *Cancer.* 1980 Jan;45(1):195-7.
- 16) 塩見 精朗, 小林 滋, 中川 浩之, 林田 康男, 前川 武男, 榊原 宣, ほか. 胆嚢癌を併存した choledochocoele の 1 例. *日本消化器外科学会雑誌.* 1989;22(4):957-60.
- 17) 佐々木 秀, 立本 直邦, 小林 健, 内藤 浩之, 甲斐 良樹, 村上 義昭, ほか. 十二指腸乳頭部癌を合併した Choledochocoele の 1 例—癌合併の報告 17 例の検討—. *日本消化器外科学会雑誌.* 2006;39(4):470-5.
- 18) 中原 一有, 洞口 淳, 藤田 直孝, 野田 裕, 小林 剛, 伊藤 啓, ほか. Choledochocoele に合併した広範囲胆管癌の 1 例. *胆道.* 2009;23(1):94-100.
- 19) 藤田 祐司, 渡邊 誠太郎, 佐藤 高, 加藤 真吾, 細野 邦広, 小林 規俊, ほか. 嚢腫状に拡張した下部胆管に認められた十二指腸乳頭部癌の 1 例. *胆道.* 2013;27(2):240-6.
- 20) Antaki F, Tringali A, Deprez P, Kwan V, Costamagna G, Le Moine O, et al. A case series of symptomatic intraluminal duodenal duplication cysts: presentation, endoscopic therapy, and long-term outcome (with video). *Gastrointest Endosc.* 2008 Jan;67(1):163-8.

CASE REPORT

Choledochocoele Treated with Intraoperative Endoscopic Sphincterotomy Using the Rendezvous Method

Yohei Mano¹⁾, Yuji Soejima¹⁾, Takashi Motomura¹⁾, Ryota Nakanishi¹⁾,
Yoshihiko Fujinaka¹⁾, Koujiro Nishida¹⁾, Ikuo Takahashi¹⁾ and Takashi Nishizaki¹⁾

¹⁾Department of Surgery, Matsuyama Red Cross Hospital

A 56-year-old man was referred to our hospital with a complaint of repeated pancreatitis. US and ERCP revealed a choledochocoele and multiple bile duct stones. Endoscopic sphincterotomy (EST) and removal of stones failed because a guide wire could not be inserted into the bile duct. Thus, choledocholithotomy and “rendezvous” endoscopic sphincterotomy were performed under laparotomy. The choledochocoele disappeared and there was no biliary stricture in the intraoperative cholangiography. This present procedure is a useful modality.

Key Words: ERCP, choledochocoele, congenital biliary dilation type 3

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2016;49(2):108-114]

Reprint requests: Yohei Mano Department of Surgery, Matsuyama Red Cross Hospital
1 Bunkyo-cho, Matsuyama, 790-8524 JAPAN

Accepted: October 27, 2015

© 2016 The Japanese Society of Gastroenterological Surgery