症例報告

術前診断可能であった胆嚢管十二指腸瘻を伴う総胆管結石症の1例

谷口 理丈¹⁾ 小泉 大¹⁾ 佐田友 藍¹⁾ 木口 英子²⁾

¹⁾古河赤十字病院外科

²⁾古河赤十字病院病理部

症例は50歳の女性で、健診の腹部超音波検査で総胆管結石および肝内・肝外胆管の拡張を認め、精査目的に当院紹介受診した。CT・MRCPと上部消化管内視鏡検査から総胆管結石を伴う内胆汁瘻を疑い、ERCPで胆嚢管十二指腸瘻と診断された。手術は開腹胆嚢摘出術、十二指腸瘻孔部切除術、総胆管切石術を施行し、病理組織学的検査所見でBrunner腺を伴った十二指腸粘膜と胆嚢管粘膜が連続性をもって瘻孔を構成しており、胆嚢管十二指腸瘻と確診された。本症例では術後早期に総胆管結石の再発を認めており、術中の胆道造影と胆道ドレナージおよび術後の定期検査の重要性が示唆された。

キーワード：胆嚢管十二指腸瘻、特発性内胆汁瘻、総胆管結石症

はじめに

胆道と消化管との瘻孔形成は比較的まれで、そのなかでも胆嚢管十二指腸瘻は特に報告例が少ない¹⁾。今回、我々は術前に胆嚢管十二指腸瘻を伴う総胆管結石症と診断可能であった症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：50歳、女性

主訴：なし（健診異常）。

既往歴：なし。

現病歴：2013年11月、健診の腹部超音波検査で総胆管結石および肝内・肝外胆管の拡張を指摘され、12月に精査目的に当院紹介受診となった。

来院時身体所見：身長160.5 cm、体重56.9 kg、BMI 22.1、眼球結膜の黄染なし、胸腹部に異常所見なし。

初診時血液検査所見：ALP 781 IU/l、 γ -GTP 400 IU/lと胆道系酵素の上昇を認めたが、T-Bil 0.4 mg/dl、AST 34 IU/l、ALT 24 IU/lと黄疸や肝逸脱酵素の上昇は認めなかった。腫瘍マーカーはCEAが2.8 ng/mlと正常範囲内で、CA19-9は42.3 U/mlと軽度上昇を認めた。

腹部CT所見：肝内・肝外胆管に拡張があり、中部胆管に長径53 mmの結石を認めた。結石部分のCT値は平均70HUであり胆管内のCT値である平均10HUと比較すると高吸収であったが明瞭な石灰化所見ではなかった。胆嚢内には気腫像はあるが結石は認めなかった（Fig. 1）。

MRCP所見：長径53 mmの総胆管結石と著明に拡張した31 mmの総胆管および肝内胆管の拡張を認めた。

上部消化管内視鏡検査所見：上十二指腸角対側に瘻孔があり、同部から胆汁の流出を認めた。瘻孔内に

Fig. 1 Contrast-enhanced CT images. A slightly high density shadow is in the middle bile duct and air is found in the gallbladder.

Fig. 2 Esophagogastroduodenoscopy. The fistula is on the opposite side of the superior duodenal angle.

Fig. 3 Cholangiography. Cystic duct (arrow). Cystic duct-duodenal fistula (arrowhead).

Fig. 4 Intraoperative findings. Cystic duct-duodenal fistula (orange tape) and cystic duct (yellow tape).

は肉芽組織の増生を認めた (Fig. 2)。

ERCP/胆道造影検査所見：乳頭部よりカニューレーションし造影を行うと総胆管の拡張と中部胆管に陰影欠損像を認めた。造影後ただちに内視鏡的経鼻胆道ドレナージ (endoscopic nasobiliary drainage ; ENBD) tube へ入れ替えを行い、詳細な検討のため再度胆道造影すると総胆管から胆嚢管を介して胆嚢全体が造影されるとともに、胆嚢管から十二指腸へ造影剤の流出を認め、胆嚢管十二指腸瘻と診断した。膵・胆管合流異常は認めなかった (Fig. 3)。

以上の所見より、胆嚢管十二指腸瘻を伴う総胆管結石症と術前診断し、2014年1月手術を施行した。

手術所見：拡張した総胆管から胆嚢管が分岐し胆嚢へ至るルートとともに、胆嚢管から瘻孔を通じて十二指腸へ至る内胆汁瘻ルートを認めた。胆嚢管と胆嚢管十二指腸瘻を各々テーピングした後、胆嚢摘出術、十二指腸瘻孔部切除術、総胆管切石術を施行した。胆嚢管は総胆管から分岐した後に2-0絹糸で結紮処理し胆嚢を摘出した。十二指腸瘻孔部は瘻孔をくり抜くように切除し、十二指腸の小孔は4-0モノフィラメント糸を用いてAlbert-Lembert縫合で閉鎖した。総胆管は腹側をメスで3cm縦切開し、結石を摘出した。術中胆道鏡検査を施行した後、胆管切開部は5-0モノフィラメント糸を用いて結節縫合で閉鎖した (Fig. 4)。

摘出した総胆管結石は褐色で大きさ56×27×24mmの卵円形であった。結石成分分析ではコレステロール57%、ビリルビンカルシウム24%、脂肪酸カルシウム19%であり、混成石と考えられた (Fig. 5)。

Fig. 5 Macroscopic appearance of resected specimen. The fistula diameter is 10 mm (arrow). There is no tumor or inflammation in the fistula. The choledocholithiasis is 56×27×24 mm in size.

Fig. 6 Histological findings. a: The duodenum epithelium including Brunner's glands and cystic duct epithelium extend continuously to the fistula. b: Rokitansky-Aschoff sinus; gallbladder epithelium. c: Short epithelium and small glands; cystic duct epithelium. d: Brunner's glands; duodenal epithelium.

摘出標本肉眼所見：瘻孔の長径は 10 mm で肉眼上、瘻孔や胆嚢の粘膜面に腫瘍性病変は認めず、胆嚢結石は存在しなかった (Fig. 5)。

病理組織学的検査所見：Brunner 腺を伴った十二指腸粘膜と胆嚢管粘膜が連続性をもって瘻孔を構成しており、胆嚢管十二指腸瘻と診断した。十二指腸粘膜と胆嚢管粘膜の境界は癒着や狭窄が見られず、瘻孔形成から長期間が経過していることが示唆された (Fig. 6)。

術後経過：術後は特に合併症なく経過し第 9 病日に退院した。ウルソデオキシコール酸を内服し外来で経過観察とした。2014 年 7 月（術後 6 か月）の CT および MRCP を施行したところ長径 10 mm の総胆管結石を認め、総胆管の径は 20 mm と拡張が改善していた。上部消化管内視鏡検査では十二指腸瘻孔は閉鎖

Table 1 Five cases of cystic duct–duodenal fistula in Japan (1983–2014)

Case	Author	Year	Age	Sex	Symptoms	CBD diameter	Fistula diameter	Stone	Operation
1	Umemoto ⁸⁾	1988	40	M	abdominal pain, dizziness	35 mm	4 mm	none	DG, Cho
2	Nagai ⁹⁾	1988	45	M	abdominal pain, fever, jaundice	N.D.	N.D.	CBD, IHBD	Cho, COF, CCL, T-tube
3	Bando ¹⁰⁾	2000	43	M	fever	N.D.	N.D.	CD	CD ligation, COF
4	Ebuchi ¹¹⁾	2001	85	M	abdominal pain	22 mm	2 mm	r-CD, CBD	r-CD resection, COF, CCL, T-tube
5	Our case		50	F	none	31 mm	10 mm	CBD	Cho, COF, CCL

CBD: common bile duct, N.D.: not described, IHBD: intra hepatic bile duct, CD: cystic duct, r-CD: remnant cystic duct, DG: distal gastrectomy, Cho: cholecystectomy, COF: closure of fistula, CCL: choledocholithotomy, T-tube: T-tube drainage

されていた。血液検査や腫瘍マーカーは正常範囲内であり、術前の CA19-9 高値は炎症に伴う上昇であったと考えられた。2014 年 9 月に総胆管結石再発に対して内視鏡的採石術を施行したが、採石できなかったため、内視鏡的乳頭切開術（endoscopic sphincterotomy；EST）を施行した。その後の再検査では結石像は消失しており、現在もウルソデオキシコール酸の内服を継続し経過観察中である。

考 察

内胆汁瘻は胆道系と周囲臓器との間に生じた異常交通路の総称であり、1892 年に Naunyn が初めて報告し、外傷や手術によらず自然発生的に生じたものを特発性としている²⁾³⁾。

特発性内胆汁瘻の原因は約 90%が結石に伴う炎症であり 5%が十二指腸潰瘍などの消化性潰瘍、4%が悪性腫瘍に起因する⁴⁾⁵⁾。結石による内胆汁瘻の発生機序は武藤らによると胆嚢結石や総胆管結石が陥頓し胆道閉塞が生じることで胆道内圧が急激に上昇し、周囲組織への癒着を来し、結石による圧迫によって胆道壁の循環障害壊死から穿通し瘻孔が生じると考えられている⁶⁾⁷⁾。

高枝ら¹⁾は 1,135 例の特発性内胆汁瘻の本邦報告例を集計しており、内訳は胆管十二指腸瘻 46.3%、胆嚢十二指腸瘻 34.4%、胆嚢胆管（肝管）瘻 9.3%、胆嚢結腸瘻 8.3%であり、胆嚢管十二指腸瘻の報告例はない。医学中央雑誌（1977～2014 年、会議録を除く）で「胆嚢管十二指腸瘻」をキーワードに検索すると本邦報告例は自験例を含め 5 例であり、本疾患は非常にまれな内胆汁瘻である。その成因は、結石が 4 例、胃潰瘍合併が 1 例であった（Table 1）^{8)～11)}。

内胆汁瘻における臨床症状は、胆石症のような腹痛や発熱、黄疸がみられることがあるが、来院時には既に症状が軽快していることも多い。これは瘻孔が生じることで一時的にせよ胆道内圧の上昇が改善したことによると考えられる¹²⁾。本症例でも受診前の 4～5 年の間に感冒様の発熱や腹痛症状を繰り返していたが、市販薬の使用のみで短期間に改善していたことが問診で明らかとなっており、内胆汁瘻に典型的な経過といえる。

しかし、内胆汁瘻は正規のドレーナージルートではなく、結石の増大や移動などの変化によって胆汁流出が不安定となり、胆道ドレーナージが不良となることで、瘻孔を介して胆道感染を合併し発熱や腹痛、肝障害などが繰り返し出現することから外科的治療が原則となる⁷⁾¹³⁾。Kune¹⁴⁾は治療方法の原則として 1) 原疾患の治療、2) 瘻孔切除と瘻孔開口部の閉鎖、3) 適切な胆道ドレーナージが重要であるとしている。

本症例では 1) 胆嚢摘出術および総胆管切石術、2) 十二指腸瘻孔部切除術を施行した。3) に関しては 30 mm 以上の胆管拡張を認めたため、胆汁の流出は良好であろうと考えドレーナージチューブを留置しなかった。しかし、術後早期の総胆管結石再発という結果からは、術中に胆道造影を行い、胆汁の流出経路の確認や必要に応じて C-tube などの胆道ドレーナージが必要であったと考えられる。

総胆管結石の術後再発については1) 術中に同定できなかった遺残結石の可能性, 2) 胆汁うっ滞や胆道感染などによる再発結石の可能性が考えられる. いずれの機序であっても術中に胆道造影を施行し, 遺残結石の有無や十二指腸への造影剤の流出, 肝内胆管の造影を検討することで再発を回避できた可能性がある.

内胆汁瘻の手術では, 瘻孔切除後の胆汁ドレナージルートの確保が重要であり, Kune¹⁴⁾の3原則を遵守しなければならない. また, 術後の経過観察ではCTやMRCPなどの画像診断を行い, 総胆管結石の有無をチェックする必要があると考えられた.

利益相反: なし

文献

- 1) 高枝 正芳, 野田 八嗣, 臼田 里香, 竹森 康弘, 上野 一夫, 島 弘三, ほか. 特発性内胆汁瘻の本邦報告例の集計結果—とくに自験例を含む胆嚢結腸瘻を中心に—. 臨床消化器内科. 1991;6(5):705-8.
- 2) Naunyn B. Ulcerative affections of the biliary passage and fistula formation. In: Naunyn B, editor. Klinik der Cholelithiasis. Leipzig: FCW. Vogel; 1892. p. 139-41.
- 3) Willard JH. Biliary fistulas. In: Bockus HL, editor. Gastroenterology, Vol. 3. Philadelphia: Saunders; 1965. p. 850-74.
- 4) ReMine WH. Biliary-enteric fistulas. Natural history and management. Adv Surg. 1973;7:69-94.
- 5) Peskin GW. Biliary fistula. In: Way LW, Pellegrini CA, editors. Surgery of the gallbladder and bile ducts. Philadelphia: Saunders; 1987. p. 569-79.
- 6) 武藤 良弘, 内村 正幸, 脇 慎治, 林 輝義, 鮫島 恭彦, 千葉 憲哉, ほか. Obstructive cholecystopathy (閉塞性胆嚢症)の臨床病理学的検討—胆嚢病変と臨床症状との関連について—. 日本消化器外科学会雑誌. 1981;14(5):672-8.
- 7) 鮫島 恭彦, 内村 正幸, 武藤 良弘, 脇 慎治, 林 輝義, 中山 正明, ほか. 胆石による内胆汁瘻形成例の検討. 日本臨床外科医学会雑誌. 1982;43(8):960-6.
- 8) 梅本 敬夫, 石川 亨, 鷺見 靖彦, 吉田 明彦, 五島 秀行, 鷹尾 博司, ほか. 総胆管拡張症に合併した先天性胆嚢管十二指腸瘻の1治験例. 日本臨床外科医学会雑誌. 1988;49(1):88-92.
- 9) 永井 規敬, 大橋 東二郎, 後町 浩二, 小池 洸, 高山 公洋, 穴戸 寛治, ほか. 乳頭形成術後急性腎不全を合併した肝内結石例での胆道鏡下電気水圧衝撃波の利用. Endoscopic Forum for digestive disease. 1988;4(1):212-7.
- 10) 坂東 正, 霜田 光義, 齊藤 素子, 長田 拓哉, 廣川 慎一郎, 塚田 一博. 胆嚢管十二指腸瘻を伴う Mirizzi 症候群の1例. 胆道. 2000;14(2):125-9.
- 11) 江淵 義昭, 蜂矢 朗彦, 岩崎 格, 岡野 直樹, 三浦 富宏, 片山 雅彦, ほか. 遺残胆嚢管十二指腸瘻の1例. Gastroenterological Endoscopy. 2001;43(9):1859-64.
- 12) 板野 聡, 寺田 紀彦, 堀木 貞幸, 児玉 雅治, 後藤田 直人, 浦上 正弘. 総胆管結石症に合併し2個の瘻孔を形成した総胆管十二指腸瘻の1例. Gastroenterological Endoscopy. 1999;41(3):351-7.
- 13) 竹中 芳治, 石山 純司, 酒井 滋, 山川 達郎. 胆石症が原因と思われる特発性内胆汁瘻7例の検討. 日本外科系連合学会誌. 2004;29(4):721-5.
- 14) Kune GA. Internal biliary fistula. In: Kune GA, editor. Current practice of biliary surgery. Boston: Little Brown; 1972. p. 341-7.

CASE REPORT

Preoperative Diagnosis of a Cystic Duct–Duodenal Fistula with Choledocholithiasis

Masatake Taniguchi¹⁾, Masaru Koizumi¹⁾, Ai Sadatomo¹⁾ and Eiko Kiguchi²⁾

¹⁾Department of Surgery, Koga Red Cross Hospital

²⁾Department of Pathology, Koga Red Cross Hospital

A 50-year-old woman was referred because abdominal US showed choledocholithiasis and dilation of the common bile duct. Contrast-enhanced CT scan, MRCP, and esophagogastroduodenoscopy demonstrated a spontaneous internal biliary fistula, and ERCP revealed a cystic duct–duodenal fistula. We performed cholecystectomy and fistulectomy, as well as choledocholithotomy. Histological findings were consistent with a cystic duct–duodenal fistula because the duodenum epithelium, including Brunner's glands and cystic duct epithelium, continued to the fistula. Postoperatively, the patient developed a recurrence of the choledocholithiasis. Intraoperative cholangiography and adequate biliary drainage are necessary with periodic follow-up to monitor for recurrence of choledocholithiasis.

Key Words: cystic duct–duodenal fistula, spontaneous internal biliary fistula, choledocholithiasis

[Jpn J Gastroenterol Surg. 2016;49(6):504-509]

Reprint requests: Masatake Taniguchi Department of Surgery, Jichi Medical University

3311-1 Yakushiji, Shimotsuke, 329-0498 JAPAN

Accepted: January 27, 2016