総胆管コレステローシスの2例

町立大河原病院外科, 東北大学抗酸菌病研究所病理学部門*

徳村 弘実 清水 文人 手塚 文明*

総胆管コレステローシスの2例を経験した。症例1は53歳の男性で、内視鏡的逆行性胆道膵管造影で胆嚢結石と総胆管末端部付近の小陰影欠損像がみられ総胆管径は10mmであった。術中胆道鏡で多数の黄白色、小球形の病変が乳頭部直上粘膜に付着していた。胆嚢には純コレステロール結石1個とコレステローシスが存在した。症例2は73歳の女性で胆嚢結石の診断で手術を行ったがウルソの4か月間の内服で結石は溶解消失していた。胆嚢にびまん性のコレステローシスがみられた。総胆管は径17mmと拡張あり胆道鏡で乳頭部直上に症例1と同様の病変がみられた。組織学的に粘膜上皮下にfoam cellの集簇が認められた。2例とも総胆管コレステローシスに対し胆管匙で摘除するととどめT字管ドレナージを行った。文献的に本症は胆嚢にコレステロール石やコレステローシスを随伴することが多く、その好発部位も乳頭部直上であった。

Key words: cholesterosis, common bile duct, papilla of Vater

はじめに

総胆管コレステローシスは1958年 Fock¹⁾が最初に1例報告しているが、以後報告例は少なく本邦では2件16例^{2,3)}を数えるに過ぎないまれな疾患といえる。今回著者らは胆石手術中に胆管鏡で総胆管下部にコレステローシスを観察しえた2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1: 53歳, 男性。

昭和60年7月1日, 悪寒と39℃の発熱あり近医受診, 眼球結膜に黄疸を指摘され当院内科を紹介され入院した。血液検査で白血球増多と血沈亢進あり, 総ビリルビン3.7mg/dl, GOT 215IU/L, GPT 208IU/L, ALP 17.4KA およびγ-GTP 200IU/Lと肝機能障害を認めた。

内視鏡的逆行性胆道膵管造影(endoscopic retrograde cholangiopancreatography: ERCP)で胆嚢内に1個の楕円形の陰影欠損像がみられ, 総胆管は径10mmで乳頭部直上に不整形の小さな陰影欠損像が認められた(Fig. 1)。同年8月6日胆嚢結石症および総胆管末端部の腫瘍疑いで胆摘術・術中胆道鏡を施行した。

手術所見: 胆嚢には20×18×18mm大の純コレステロール石あり, 底部粘膜にコレステローシスをみた

(Fig. 2)。膵頭部や十二指腸に著変ない。

胆道鏡所見: 胆管内には結石はみられなかったが, 総胆管末端部近傍に黄白色, 球形でポリープ状の小隆起が一部散在性に一部葡萄の房状に集簇して胆管壁に付着していた(Fig. 3)。総胆管のコレステローシスと考え胆道鏡でこの小隆起を愛護的, 可及的に摘除した後, T字管ドレナージを行った。乳頭部は5mmのゾンデが軽い抵抗を持って通過した。

術後経過: 胆汁培養では胆嚢, 総胆管とも streptococcus faecalis が検出された。術後胆道鏡では数個の小隆起の残存がみられたが摘除せず退院した。術後1年の内視鏡的逆行性胆道造影像では, 総胆管径は11mmで総胆管末端部付近に明らかな陰影欠損像もみられなかった。術後4年の肝機能検査は正常域で症状なく健常である。

症例2: 73歳, 女性。

1か月前より右季肋部鈍痛あり平成元年1月10日当院内科受診, 腹部超音波検査で胆嚢結石1個と総胆管の拡張みられ入院した。検査成績では血液一般や肝機能に異常ない。

ERCP: 胆嚢に結石と考えられる直径1cmほどの円形の陰影欠損像が認められた。総胆管は径17mmと拡張あるが結石像などはない。乳頭部に軽度の硬化像みられ造影剤の排出がやや遅延していた(Fig. 4)。

患者の希望で一時退院しウルソデオキシコール酸(ursodeoxycholic acid: UDC) 300mg/日を4か月間

<1991年2月13日受理>別刷請求先: 徳村 弘実

〒981 仙台市青葉区台原4-3-21 東北労災病院
外科

Fig. 1 Case 1: ERCP shows a round filling defect in the gallbladder (a) and a small and irregular one of the lower portion of the common bile duct (a, b ↓).

Fig. 2 The resected gallbladder had one pure cholesterol stone and cholesterosis on the mucosa of the fundus.

Fig. 3 Cholangioscopy shows yellowish-white multipolypoid cholesterosis in the common duct just above the papilla of Vater (case 1).

服用したが、腹痛が時折みられるため再入院し同年7月10日手術を施行した。

手術所見：胆嚢は炎症所見に乏しく粘膜のほぼ全域にコレステロシスが観察された(**Fig. 5**)。しかし結石は存在せず、UDCの4か月間の内服により胆石が溶解したものと考えられた。胆摘術後、胆道鏡を施行した。

胆道鏡所見：胆管内には結石はなかったが乳頭部の約1cm肝側に黄白色で球状の径1mm程度のポリープが数個総胆管壁に付着していた(**Fig. 6**)。胆道匙で愛

Fig. 4 Case 2: ERCP reveals a negative shadow representing a gallstone in the gallbladder. Dilatation of 17mm in diameter is seen in the common duct.

Fig. 5 Diffuse cholesterosis was seen on the mucosa of the resected gallbladder.

護的に摘除し一部生検にあてた。乳頭部は4mmのゾンデが軽い抵抗を持って通過した。

胆汁培養は胆嚢、総胆管とも陰性であった。なお胆嚢、総胆管胆汁の脂質組成について検討したが、lithogenic index はともに0.52と低く胆汁酸画分ではUDCが50%以上を占めUDC内服による組成の変化が認められた。

組織学的所見：総胆管より生検した病変は、**Fig. 7**のように粘膜上皮直下に明るく腫大した foam cell の

Fig. 6 About ten spots of polypoid cholesterosis was observed by the cholangioscopy (case 2).

Fig. 7 Microscopic findings: There were a great number of foam cells in the subepithelial layers of the common duct (a) and gallbladder (b). (H. E. $\times 200$)

集簇が観察され、コレステローシスと診断された。摘出胆嚢にも同様の所見が認められた。

術後のT字管造影では総胆管の拡張は変わらなかったが乳頭部の通過状態は良好であった。退院後3

か月経過するが肝機能は正常で愁訴もない。

考 察

総胆管コレステロシスは本邦では2件16例しか報告されていない。岡信ら²⁾は1例報告で、術中胆道鏡で総胆管末端部付近に本症を認め胆嚢にはコレステロール石とコレステロシスを併存しており、今回の2例と病態が類似していた。神谷ら³⁾は先天性胆管拡張症7例、膵胆道系悪性腫瘍5例および胆石症3例の計15例に本症を観察しており、胆道鏡と実体顕微鏡を頻用すればまれな疾患ではないことを強調している。随伴病変としては先天性胆管拡張症7例中6例に胆嚢コレステロシスを、1例に胆嚢コレステロシス結石をみている。胆石症3例はすべてコレステロール石で、2例に胆嚢コレステロシスを認めた。

欧米では、Grosse⁴⁾が剖検例2,000例中9例に乳頭部から10mm付近に総胆管コレステロシスを発見しており、うち5例に胆嚢コレステロール石を他の3例には胆嚢コレステロシスを認めている。Bontempini⁵⁾は胆嚢にまったく変化のない1例を報告した。Fockは胆嚢結石の胆摘術後10年して総胆管結石症で総胆管切開した所にコレステロシスのみられた1例を報告している。またMoodyら⁶⁾は10年以上の上腹部痛を有した92例に乳頭形成術を行いうち11例に乳頭部のコレステロシスをみている。

以上から総胆管コレステロシスは胆嚢にコレステロール石やコレステロシスを随伴していること、その好発部位は乳頭部付近であることが本症の特徴といえよう。

本症の成因が胆嚢コレステロシスとはほぼ同じであろうことは想像に難くない。胆嚢コレステロシスは、組織学的には粘膜上皮で胆汁中コレステロールが吸収されester化されたものを貪食したmacrophageがいわゆるfoam cellの形となり粘膜固有層に集簇して粘膜が内腔に突出した状態をさす⁷⁾。このfoam cellはリンパ管に入り込むが、何らかの原因でリンパ管が閉塞し破綻すると粘膜固有層にfoam cellが蓄積すると考えられている⁸⁾。この原因としては胆嚢の慢性炎症によるリンパ管の閉塞や胆嚢粘膜上皮のコレステロール過剰吸収あるいは高コレステロール胆汁によるコレステロール吸収増加など⁹⁾が挙げられるが定説はない。

胆嚢コレステロシスにコレステロール石が高頻度に併存することは周知の事実だが、胆嚢コレステロシスのみでもlithogenic bileとなっているという報告^{10)~12)}が多い。またコレステロシス塊が胆汁中へ脱

落し結石の核をもたらすことでコレステロール石形成の引金になっているとも考えられている¹⁰⁾。しかし、Tilvisら¹³⁾は無石胆嚢コレステロシスの胆嚢胆汁を対照例と比較検討したところ、コレステロールの相対濃度は上昇しておらず胆嚢粘膜でのsterolの吸収およびester化の方に変化が認められたと述べている。

いずれにせよ総胆管胆汁は胆嚢胆汁よりかなり薄く、また総胆管の粘膜上皮自体も胆嚢のように胆汁脂質の吸収は盛んではないと思われる。したがって前述したような胆嚢コレステロシスの成因から考えれば、総胆管にコレステロシスが少ないのはうなずける。乳頭部付近が本症の好発部位なのは同部の胆汁組成や粘膜の性質が比較的胆嚢に近い状態にあるのではないかと想像されるが今後の検討を期待したい。

本症の確定診断は組織学的に胆管粘膜上皮下のfoam cellの集簇を観察することによって得られるが、肉眼所見として胆管壁に黄白色で球状の小ポリープあるいはやや扁平な斑点があれば胆嚢の場合と同様に本症と診断して差し支えないと考えられる。一方、本症は画像所見に乏しくその術前診断が困難と思われる。今回の2例でもERCPで総胆管末端部付近には軽微な変化しか指摘できず症例1では総胆管の拡張が軽度であり、また岡信らの症例では拡張が認められていない。したがって総胆管の変化が軽度であっても胆道鏡を励行することが本症発見の糸口になると考えられた。

本症が乳頭部付近の胆汁通過障害をおこし症状を発現させるかどうかは不明であるため、治療として乳頭形成術などの胆道ドレナージ術をすべきかどうかとも定まっていない。今回の2例の場合は病変部を愛護的に胆道匙で摘除するにとどめた。ともに退院後愁訴なく肝機能異常もほとんどみられていないが注意深い経過観察が必要と考えている。今後、本症の病的意義の解明と治療方針の確立が待たれるところである。

本論文の一部は第124回日本消化器病学会東北支部例会(1986年2月・仙台)において発表した。稿を終えるにあたり、御指導を賜りました東北労災病院外科松代隆先生に厚く御礼申し上げます。

文 献

- 1) Fock G: Cholesterosis of the common bile duct: Report of a case. Acta Chir Scand 116: 33-35, 1958
- 2) 岡信孝治, 大西長久, 富岡憲明ほか: 総胆管多発ポリープ型コレステロシスの1例. 胆と膵 6: 1427-1432, 1985

- 3) 神谷順一, 二村雄次, 早川直和ほか: 総胆管コレステロシスの検討. 日消病会誌 83: 189—195, 1986
- 4) Grosse H: Cholesterinester-Stippchen in suprapapillaren Teil des Ductus choledochus. Virchows Arch Pathol Anat 332: 478—480, 1959
- 5) Bontempini L: Considerazioni in tema di cholesterosi del choledoco. Pathologica 72: 409—412, 1980
- 6) Moody FG, Becker JM, Potts JR: Transduodenal sphincteroplasty and transampullary septectomy for postcholecystectomy pain. Ann Surg 197: 627—636, 1983
- 7) 為末紀元, 江口季夫, 志村秀彦: 特殊病態と治療指針—Cholesterosis—. 肝・胆・膵 7: 1003—1007, 1983
- 8) 古賀明俊, 藤堂 省, 西村正也: 胆嚢 cholesterosis の成因に関する電顕的研究. 日消病会誌 71: 1085—1101, 1974
- 9) 大熊隆介: いわゆる絨様胆嚢 (胆嚢コレステロシス) の病理および病因に関する研究. 福岡医誌 57: 415—438, 1966
- 10) 山本皓正: 胆のう cholesterosis におけるコレステロール系結石形成に関する研究. 日消病会誌 76: 91—102, 1979
- 11) 田村武男: 絨様胆嚢の本態並びに成因に就いての研究. 福岡医誌 50: 3505—3514, 1959
- 12) Illingworth CFW: Cholesterosis of the gallbladder: A clinical and experimental study. Br J Surg 17: 208—229, 1929
- 13) Tilvis RS, Aro J, Strandberg TE et al: Lipid composition of bile and gall-bladder mucosa in patients with acalculous cholesterosis. Gastroenterology 82: 607—615, 1982

Two Cases of Cholesterosis of the Common Bile Duct

Hiromi Tokumura, Fumito Shimizu and Fumiaki Tezuka*

Department of Surgery, Ogawara Town Hospital

*Department of Pathology, The Research Institute for Chest Disease and Cancer, Tohoku University

Cholesterosis of the common bile duct was observed in two patients under peroperative cholangioscopy. Case 1: a 53-year-old man was admitted to our hospital because of fever and jaundice. Endoscopic cholangiography showed a round filling defect in the gallbladder and a small and irregular one in the lower portion of the common bile duct of 10 mm in diameter. Peroperative cholangioscopy revealed yellowish-white multipolypoid cholesterosis in the common duct just above the papilla of Vater. The resected gallbladder had one pure cholesterol stone and cholesterosis in the mucosal membrane of the fundus. Case 2: A 73-year-old woman, diagnosed as having cholecystolithiasis, had been taking ursodeoxycholic acid (300 mg/day) for 4 months. She underwent cholecystectomy and choledochotomy with T-tube drainage. There were no stones in the gallbladder, but the organ showed diffuse cholesterosis. We considered that cholesterol gallstones which had been present in the gallbladder had been dissolved and disappeared during 4 months' administration of ursodeoxycholic acid. About 10 spots of polypoid cholesterosis were observed, by peroperative cholangioscopy, in the suprapapillary portion of the common duct which was dilated to 17 mm in diameter. Histological examination showed that there were many foam cells in the subepithelial layers of the common duct.

Reprint requests: Hiromi Tokumura Department of Surgery, Tohoku Rosai Hospital
4-3-21 Dainohara, Aoba-ku, Sendai, 981 JAPAN