上腹部痛と黄疸にて発症し急速に増大した有菌性 biloma の 1 例

京都大学医学研究科消化器外科

桂 長門 里村 一成 日昔 秀岳
猪飼伊和夫 山本 正之 山岡 義生

外科的操作もしくは外傷の既往なしに発生する spontaneous biloma の報告はまれである。今回、3 管合流部結石嵌頓による 1 例を経験したので、文献的考察を加え報告する。症例は74歳の男性。3 年前より胆石を指摘されていた。1996年4月1日より上腹部痛、黄疸、発熱が生じ、同4日当科へ紹介された。同日午前の MRI では特に有意な所見を認めなかったが、約5時間後の CT などでは、肝左葉の上下面に巨大な嚢胞様の低吸収域を認め、穿刺液の成分検査から biloma (胆汁性嚢胞) と診断された。培養検査で *Klebsiella pneumoniae* を証明した。

このように急速に増大した biloma を論じた報告はなく、従来緩徐に形成されるとされていた物とは別に、胆道内圧の急激な上昇により肝被膜下に貯留する機転が存在することが示唆された。したがって、急速に増大する biloma が存在する場合は、胆道系の閉塞の可能性も疑い、CT などで検索すべきと思われた。

Key words: spontaneous biloma, confluence stone, jaundice

はじめに

胆汁性嚢胞 (biloma) の報告は、TAE などの interventional treatments の発達に伴い、近年増加の傾向にあるが、外科的操作もしくは外傷の既往無しに発生したとされる報告は、自験例を含め22例を認めるのみであり¹⁾、嚢胞内溶液より有意菌を証明したものは、我々の調べえる限りでは過去に4例を認めるのみである^{2)~4)}。今回、我々はいくつかの特徴的所見を呈した3 管合流部結石嵌頓による spontaneous biloma の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：74歳、男性

主訴：上腹部痛、黄疸

既往歴：12歳から16歳の間に3回黄疸を指摘されたことがあったが、いずれも自然軽快していた。1991年5月(70歳時)に、急に激しい腹痛を生じ他院へ緊急入院し、その際、腹部超音波検査(以下、US)、computed tomography (以下、CT)にて胆石を指摘された。しかし、その後症状がなかったため放置していた。1995年7月(73歳時)右季肋部痛、黄疸、および発熱を生じ、当院内科にて endoscopic retrograde cholangio

pancreatography 施行し、胆石の胆嚢管への嵌頓、および肝膿瘍との診断を受け、手術を勧められたが、抗生剤投与で軽快したため、これを拒否し、その後再び放置していた。

なお、糖尿病の既往は認めなかった。

現病歴：1996年4月1日(74歳時)より上腹部痛が出現し、黄疸も指摘されたため、同年4月4日近医より当科へ紹介された。

入院時現症：血圧142/72mmHg、脈拍80/min、体温38.2°C。皮膚および眼球結膜に中等度の黄染を認めた。上腹部正中から左側腹部にかけて圧痛を認め、また軽度の筋性防御も伴っていた。

入院時検査所見：WBC 16,800/mm³、CRP 32.5 mg/dl、と高度の炎症所見を呈し、GOT 22IU/L、GPT 64IU/L、 γ -GTP 190IU/L、T. Bil 7.6mg/dl、LAP 119 IU/L など肝胆道系酵素が軽度から中等度上昇していた (Table 1)。

入院当日の朝の紹介医での magnetic resonance imaging (以下、MRI) では胆道系およびその周囲に特記すべき所見は認められなかった。

当科入院後(4月4日午後)、US を施行したところ、肝左葉の背腹側に分かれて限局化された嚢胞様の低エコー域を認めた (Fig. 1)。また、CT にても同様の所見を得たが、胆嚢および総胆管内に結石などの閉塞機

<1997年5月21日受理>別刷請求先：桂 長門
〒606-01 京都市左京区聖護院川原町54 京都大学医学部医学研究科消化器外科

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	16,800 /mm ³	GOT	22 IU/L	CHE	162 IU/L	CEA	4.4 ng/ml
RBC	490×10 ⁴ /mm ³	GPT	64 IU/L	T. Bil.	7.6 mg/dl	AFP	<3.0 ng/dl
Hb	14.1 g/dl	LDH	184 IU/L	D. Bil.	5.2 mg/dl	CA125	89 U/ml
Ht	41.7 %	ALP	431 IU/L	Crea.	1.3 mg/dl	CA19-9	13 U/ml
PLT	19.9×10 ⁴ /mm ³	γ-GTP	190 IU/L	UA	4.3 mg/dl		
PT	12.4 sec. 71%	LAP	119 IU/L	BUN	25 mg/dl		
APTT	29.5 sec.	T.P.	5.7 g/dl	CPK	54 mg/dl		
Fib	773 mg/dl	Alb.	2.8 g/dl	TBA	9 μmol/L		
HPT	91 %			Glu.	179 mg/dl		
AT-III	74 %			Amy	25 mg/dl		
D-dimer	5.1			Na	135 mEq/L		
CRP	32.5 mg/dl			K	3.6 mEq/L		

Fig. 1 Ultrasonography performed on April 4th, 1996, showing low echoic area at the dorsal side of the left liver lobe. **Fig. 2** CT scan performed on April 4th, 1996, showing low density area at abdominal and dorsal sides of the left liver lobe.

転を示唆する有意な所見はなかった。肝内胆管の拡張はなかったが、総胆管は1.0cmと軽度拡張していた (Fig. 2)。

これに対し、直ちに肝下面の嚢胞に対して経皮経肝的にドレナージを行った。約1,300mlの黄色泥状の排液の流出を認め、排液の生化学的検査から胆汁成分が証明されたことから、肝被膜下胆汁性嚢胞 biloma であると診断した。また、細胞診検査では class I であったが、細菌培養検査で *Klebsiella pneumoniae* を2+認めた (Table 2)。感受性検査により選択した抗生剤投与とドレナージにより徐々に改善を認めたものの、完全には解熱せず、黄疸も軽度残存したので、第5病日再びCTを施行したところ、肝背側の biloma のみ縮小しており、左葉腹側のものはむしろ拡大していた。また、右葉の肝内胆管は軽度拡張を呈していた (Fig. 3)。そこで第9病日、左葉腹側の biloma に対し再び経

Table 2 Laboratory data of drainage fluid

T. Bil. 31.2 mg/dl	D. Bil. 27.0 mg/dl
TBA 9,600 μmol/L	
Cytology class I	
Bacterial culture <i>Kleb. pneumoniae</i> 2+	

皮的にドレナージを行った。約300ml/日の排液を得たが、bilomaへの胆汁の供給も持続しているためか、左葉表面の biloma は緩徐に縮小した。しかし、症状寛解には至らず、第13病日、B₆より percutaneous transhepatic biliary drainage (以下、PTBD) を施行した。

造影にて3管合流部に径約1cmの合流部結石を認めた (Fig. 4)。約300ml/日の排液を得、第18病日には白血球8,500/mm³、T. Bil 2.4mg/dl までに軽快

Fig. 3 CT scan performed on April 8th, 1996, showing biloma at the abdominal side of the left liver lobe but the cystic lesion at the dorsal side disappeared. (the patient could not keep a supine position due to general fatigue.)

Fig. 4 Percutaneous transhepatic cholangiography revealed confluence stone (arrow).

した。食事も経口にて再開し全量摂取するなど一般状態も良好となった。第25病日に施行したCTでは biloma は消失していた (**Fig. 5**)。第28病日、胆嚢摘出、

Fig. 5 CT scan performed on April 28th, 1996, showing no biloma.

総胆管切開切石術、胆嚢管ドレナージ tube 留置を施行。術中所見としては、biloma が存在したと思われる場所に、肝被膜が浮き上がった様子が観察された。術後経過に特に問題なく、第41病日に退院となった。**Fig. 6** に経過を示す。2度の経皮的 biloma ドレナージでは症状の消失は見られなかったが、PTBD 後に寛解に至っている様子が認められる。

考 察

biloma (胆汁性嚢胞) とは、1979年 Gould と Patel⁵⁾ が、鈍的外傷により生じた32歳男性の1例を報告した際に初めて用いた用語である。近年、interventional therapy の発達に伴い iatrogenic biloma の報告^{6)~8)}が増加しているが、外傷や外科的既往のない例の報告はまれであり、総胆管結石などの原因により生じたとされる spontaneous biloma は、検索しえた限りにおいては自験例が本邦では22例目である¹⁾。

従来、biloma は Vazquez ら⁹⁾、中島ら¹⁰⁾の報告にもみられるように、胆管系の破綻から、濃縮されていない胆汁が緩徐に流出した場合に漿膜成分の被胞化が起こり生じるとされており、廣橋ら¹¹⁾の組織学的検索では、嚢胞壁の構成成分は、一部に繊維性結合組織を認める脂肪組織を主体としたものであったと述べている。一方、曾川ら¹²⁾は、急速に腹部膨満をきたし見出し出された80歳女性の肝被膜下 biloma 例を報告している。

以上より、spontaneous biloma の生成機転には、緩徐な胆汁流出に伴う形成機転とは別に、肝被膜下に急速な胆道内圧の上昇に伴って増大する機転があると考えられる。当症例では、午前中の MRI では肝外周囲の

Fig. 6 The clinical course from admission to surgery.

biloma size
abdominal

dorsal

限局性の腹水程度に見られていたものが、約5時間後には、巨大な嚢胞に増大していることより、後者と同様の発生機転が推察される。前者の機転による場合には、来院時のCTなどで肝周囲に軽度の腹水を認めたという程度にとどまることが多く、bilomaの発生を画像的に見逃したまま自然治癒していたものと考えられる。後者のように急速に増大するbilomaがある場合には、胆道系の閉塞機転を念頭に置いて、数時間の経過で再度画像診断を試みるべきであると思われる。また、我々の症例では、経過中数回にわたりbilomaと胆道系の交通を証明すべく drainage tube より造影検査を試みたが、画像的に識別できる胆道破綻は証明されず、bilomaのみの drainage では不十分であった。化膿性胆管炎症状を呈する例では、biloma drainageのみではなく、PTBDなどの胆道系の直接の drainage が必要であることを示唆していると思われる。

文 献

- 1) 曾川慶同, 宮崎 勝, 海保 隆ほか: 総胆管結石嵌頓に併発し経皮的ドレナージにより治癒した肝被膜下 biloma の1例. 日臨外医会誌 57: 667-672, 1996
- 2) 大滝修司, 山川達郎, 三芳 端ほか: 急性胆嚢炎に併発した胆汁性仮性嚢胞の3治験例. 日消外会誌 25: 1100-1104, 1992
- 3) 谷本 晃, 坂本敦司, 田中健二ほか: 総胆管結石嵌頓に合併した肝内胆汁性嚢胞 (Biloma) の1例. 胆と膵 7: 1053-1058, 1986
- 4) 吉井克己, 鈴木隆文, 落合 匠ほか: 総胆管結石嵌頓による胆汁性嚢胞に対して内視鏡的乳頭切開切石術が有効であった1例. 外科 55: 1669-1674, 1993
- 5) Gould L, Patel A: Ultrasound detection of extrahepatic encapsulated bile "biloma". Am J Retogenol 132: 1015-1015, 1979
- 6) 平 栄, 多田 明, 滝田佳夫ほか: TAE後に形成された肝内 Biloma (bile lake) の2例. 画像診断

- 12: 849—852, 1992
- 7) 猫橋俊文, 森本 晋, 里井重仁ほか: Lipiodol 併用肝動脈塞栓療法後に発生し, 門脈血流障害を来した肝内胆汁性嚢胞の 2 例. 日消病会誌 90: 720—724, 1993
- 8) 南部俊和, 吉川裕幸, 白土博樹ほか: 肝悪性腫瘍に対する動注塞栓療法後に形成された biloma の検討. 癌の臨 36: 2420—2426, 1990
- 9) Vazquez JL, Thorsen ML, Dodds WJ et al: Evaluation and treatment of intraabdominal biloma. Am J Radiol 144: 933—938, 1985
- 10) 中島信久, 平良健康, 大嶺 稔ほか: 総胆管結石嵌頓に併発した Biloma の 1 例. 日外会誌 94: 412—415, 1993
- 11) 廣橋喜美, 原田貞美, 佐藤清治ほか: 肝外胆汁性嚢胞いわゆる “biloma” の 1 治験例. 日消外会誌 22: 2445—2448, 1989

A Case Report of a Spontaneous Biloma Growing Rapidly with Infection

Nagato Katsura, Kazunari Satomura, Syugaku Himukashi, Iwao Ikai,
Masayuki Yamamoto and Yoshio Yamaoka

Department of Gastroenterological Surgery, Kyoto University Graduate School of Medicine

We report a case of a spontaneous biloma associated with an incarcerated confluence stone. A 74-year-old man was admitted to our hospital because of upper abdominal pain, jaundice, and fever. Abdominal MRI performed in the morning of the admission day showed no specific findings. But, about 5 hours later on the same day, abdominal CT and ultrasonography revealed large cystic lesions located on the anterior and posterior surfaces of the left lobe of the liver. Since aspirated fluid revealed bile infected with *Klebsiella pneumoniae*, the lesions were diagnosed as bilomas with infection. We could not find any previous report on such a rapid-growing biloma following obstruction of the bile duct with a confluence stone. A biloma is usually slow-growing. Our rare case suggests that we should conduct CT or ultrasonography repeatedly to detect the possibility of bile duct obstruction when we find a rapid-growing biloma.

Reprint requests: Nagato Katsura Department of Gastroenterological Surgery, Kyoto University Graduate School of Medicine
54 Syogoinkawaramachi, Sakyo-ku, Kyoto, 606-01 JAPAN