症例報告

若年者に発症した特発性胆嚢穿孔の1例

王子総合病院外科

妻鹿 成治 川崎 亮輔 岩井 和浩
浅野 賢道 狭間 一明

症例は生来健康な24歳の男性で、急性腹症にて当院へ救急搬送となった。初診時腹部CTにて肝外側より肝下面を中心に腹水貯留を認め、腹部所見、血液検査結果などを踏まえ、同日緊急手術を施行した。開腹時所見として、胆汁性腹水の貯留を認め、Hartmann's pouch 近傍の胆嚢体部に径約3mmの穿孔部を確認した。その他、腹腔内臓器に明らかな異常所見は認めず、胆嚢摘出および腹腔内洗浄ドレナージ術を施行した。摘出胆嚢には胆石や慢性炎症所見などは認められず、特発性胆嚢穿孔と考えられた。病理組織学的に穿孔部近傍の微小血管に血栓を認めた。術後経過は良好で第10病日に退院となった。上腹部痛を主訴とし、free airを伴わない腹水貯留を認める急性汎発性腹膜炎症例では、若年者においても本疾患を念頭におくべきであると考えられた。

はじめに

特発性胆嚢穿孔は胆石や胆嚢炎を有さずに、原因不明の穿孔を来す比較的まれな疾患である。これまで、本邦における文献的報告は29例認めるが、40歳以下の発症報告は会議録などを含めても存在しない。今回、我々は胆嚢壁内の微小血栓による虚血が原因と考えられた、若年者に発症した特発性胆嚢穿孔の1例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

症例：24歳、男性

主訴：上腹部痛

既往歴、家族歴：特記事項なし。

現病歴：2006年11月下旬、2日前より上腹部違和感を自覚していたが通常どおり勤務していた。夕方から上腹部痛の増強を認め、同日夜当院へ救急搬送となった。

初診時現症：身長176cm、体重90kg。体温36.8℃、血圧112/62mmHg、脈拍84回/分、整。黄疸は認めず。上腹部を中心に著明な圧痛を認め、

反跳痛、筋性防御を認めた。

血液検査所見：WBC 24,200/mm³、CRP 1.76 mg/dl、血清 Amy 653IU/l、CPK 308IU/lと異常高値を認めた。心電図検査所見に異常は認めなかった。

胸腹部単純X線写真：特記すべき異常は認めず。

腹部超音波検査所見：中等度の胆嚢腫大および肝周囲の腹水貯留を認めた。胆嚢内に胆泥や結石などは認めず、総胆管や膵臓を含め、その他の可視範囲に異常所見は認めなかった。

腹部CT所見：中等度の胆嚢腫大および肝周囲を中心に腹水貯留を認めた。腹腔内遊離ガス像は認めなかった (Fig. 1)。

以上より、急性汎発性腹膜炎の診断にて、緊急試験開腹術を行った。

手術所見：腹腔内には約500mlの胆汁性腹水貯留を認め、Hartmann's pouch 近傍の胆嚢体部に径3mmの穿孔を認めた。その他、可視範囲に明らかな異常は認めなかった。胆嚢摘出および腹腔内洗浄ドレナージ術を行った。遊走胆嚢の所見はなく、胆管の分岐にも異常は認めなかった。

摘出標本検査所見：胆嚢結石は有さず、胆嚢体

Fig. 1 Abdominal CT showed an enlarged gallbladder and fluid collection in the subphrenic space. But no free air in the abdomen was recognized.

部に径 3mm の穿孔を認めた (Fig. 2).

病理組織学的検査所見：胆嚢は拡張し浮腫様であったが、穿孔部周囲を含め炎症反応はほとんど認められず、背景に慢性炎症所見は認めなかった。また、穿孔部周囲の拡張血管内に血栓を認め、同部周辺の組織に浮腫・変性を認めた (Fig. 3)。

腹水培養細菌検査所見：術中に採取した胆汁性腹水培養検査は陰性であった。

術後経過：病理組織学的検査結果なども踏まえ、術後に循環器系を含む全身精査を行ったが、特記すべき異常は認めなかった。また、術前より高値であった血清アミラーゼについては、精査の結果、マクロアミラーゼ血症と考えられた。術後経過は良好で合併症なく経過し、術後 10 日目に軽快退院した。

術後 MRCP 所見：総胆管合流異常は認めなかった (Fig. 4)。

考 察

胆嚢穿孔の原因として、①胆石・胆嚢炎による

Fig. 2 Macroscopic appearance of the resected specimen showed a defect 3 mm in size was found in the body of the gallbladder near the Hartmann's pouch (arrow).

胆嚢壁の変性・圧迫壊死、②結石かん頓・腫瘍・寄生虫による胆道内圧亢進、③外傷・医療行為による損傷、④胆嚢動脈本幹の血栓・塞栓による梗塞、⑤総胆管合流異常による胆汁逆流、⑥膠原病などの全身性疾患、⑦ステロイド長期投与、⑧先天性要因などが挙げられており^{1)~3)}、一般的に胆石を伴う胆嚢炎に続発することが多い。1844 年に Duncan⁴⁾が報告して以来、その頻度は胆石胆嚢炎の 1.6~11% と報告されており、60 歳以上に多く認める^{5)~9)}。

特発性胆嚢穿孔 (以下、本疾患) は、臨床的に明らかな誘因となるべく基礎疾患を認めず、上記のような原因なしに胆嚢穿孔を来し、胆汁が無菌で胆石を認めず、胆嚢炎がないかごく軽度のものと定義されている¹⁾。検索しえたかぎり本邦ではこれまで 29 例^(3)10)~36) (Table 1) の文献的報告を認めた (医学中央雑誌, 1983~2006 年, 検索キーワード: 「特発性胆嚢穿孔」, 会議録を除く)。29 例の平均年齢は 71.6 歳 (42~94 歳), 男女比は 15:14 で性差は認めなかった。術前の特徴として、発症早期では非感染性胆汁のためか腹部所見が比較的軽いとの報告も見受けられたが、全例に共通して 1~2 日前より自覚した上腹部痛, 右季肋部痛にて発症し、白血球数や CRP が高値を示す以外には胆道系酵素やアミラーゼ, ビリルビン値などはほと

Fig. 3 a : The arrow showed the defect of the gallbladder wall. b : Histologically, small coagulations showed in the gallbladder wall near the perforation, but other parts of the gallbladder wall showed less inflammation (H & E, a ; $\times 100$, b ; $\times 200$).

んどが正常範囲内であることが多い。本疾患に特異的な所見は認めないため、術前に診断しえたのは8例(27.6%)のみで、それ以外のほとんどの症例では、急性腹膜炎の診断にて開腹術が成されていた。術前に確定診断を得るためには腹腔穿刺による胆汁性腹水の確認が重要となり、先の8例中5例が腹腔穿刺により確認を得ていた。残りの3例は腹部超音波(以下、US)とCT所見から本疾患と診断していた¹⁸⁾²⁹⁾³¹⁾。腹腔穿刺による胆汁性腹水の確認は有効であるが、穿刺可能なほどの腹水貯留を来さない場合もあり、術前診断に難渋する一つの要因である。特徴的画像所見の一つとして、経時的な胆嚢の萎縮傾向と腹水貯留の増加傾向も診断の一助になるとの報告もある¹⁾¹⁰⁾²²⁾。また、CT所見において胆嚢壁の陰影欠損を認めた報告³¹⁾や、US所見で胆嚢内腔と胆嚢周囲の貯留液との交通を示す壁欠損を hole sign として認めたとの

Fig. 4 MRCP showed no anomalous arrangement of the pancreaticobiliary ductal junction.

報告¹³⁾³⁷⁾も散見される。一方、内視鏡的胆道造影検査³⁸⁾や TC-99mDISIDA を用いた胆道シンチグラフィの有用性も報告されている³⁹⁾。しかし、本疾患は急性腹症として救急の場における対処を要することが多いため、侵襲、精度、時間などの点からも、実状は腹部所見, labo data, CT, US などの所見にて急性汎発性腹膜炎と診断し、緊急手術の適応となる場合が多い。

自験例においてはUS, CT上、腹水貯留は比較的軽度で腹腔穿刺は行わなかった。激烈な腹部所見や各検査結果を踏まえ、当初十二指腸潰瘍穿孔を疑ったが、free air を認めない点で解離していた。過去5年間に当院で施行した急性腹症手術症例において、炎症性胆嚢穿孔症例を3例認めた。これらの経験を踏まえ、年齢的には極めて可能性が低いと思われたが、画像所見から胆嚢穿孔の可能性も若干念頭におき、十分なインフォームドコンセントのもと、緊急で試験開腹術を施行した。本疾患における術式は胆嚢摘出術が基本となるが、T-tube などによる胆道ドレナージを付加した

Table 1 Reported cases of idiopathic perforation of the gallbladder in Japan

No.	Author	Year	Age/Gender	Preoperative diagnosis	Treatment	Site of defect	Thoronbi	Outcome
1	Suga ³⁶⁾	1935	60/F	Cholecystitis	cholecystectomy	Gb		Alive
2	Kobayashi ³⁵⁾	1981	59/M	Peritonitis	cholecystectomy, T-tube	Gbf		Alive
3	Haneda ³⁾	1985	63/M	Acute abdomen	cholecystectomy	Gbf		Alive
4	Matsumine ³⁴⁾	1985	66/M	Acute abdomen	cholecystectomy	Gbf	(+)	Alive
5	Hayashi ³³⁾	1986	92/F	GB perforation	cholecystectomy, T-tube	Gf		Alive
6	Takamiya ³²⁾	1988	73/F	Peritonitis	cholecystectomy	Gf	(+)	Alive
7	Ozaki ³¹⁾	1989	91/M	GB perforation	cholecystectomy	Gb	(+)	Alive
8	Takahashi ³⁰⁾	1989	56/M	Acute abdomen	cholecystectomy	Gbf	(+)	Alive
9	Sacki ²⁹⁾	1990	70/M	GB perforation	cholecystectomy	Gf		Alive
10	Shiratori ²⁸⁾	1993	75/M	GB perforation	cholecystectomy	Gb		Alive
11	Yamamoto ²⁷⁾	1993	83/F	GB perforation	cholecystectomy	Gf	(+)	Alive
12	Kakisako ²⁶⁾	1994	84/F	Acute appendicitis	cholecystectomy, T-tube	Gf	(+)	Alive
13	Koike ²⁵⁾	1994	59/M	Peritonitis	cholecystectomy	Gf		Alive
14	Matsumoto ²⁴⁾	1995	82/F	Peritonitis	cholecystectomy, T-tube	Gb		Alive
15	Migou ²³⁾	1995	61/F	Peritonitis	cholecystectomy	Gf	(+)	Death
16	Nakazawa ²²⁾	1997	42/F	Acute abdomen	cholecystectomy	Gf		Alive
17	Hasegawa ²¹⁾	1998	79/F	Peritonitis	cholecystectomy	Gb		Alive
18	Sato ²⁰⁾	1998	80/F	GB perforation	cholecystectomy	Gn		Alive
19	Ikeya ¹⁹⁾	1998	94/F	Peritonitis	cholecystectomy	Gb		Alive
20	Nishina ¹⁸⁾	1999	63/M	GB perforation	cholecystectomy	Gb		Alive
21	Fujii ¹⁷⁾	2000	70/M	Peritonitis	cholecystectomy	Gf	(+)	Alive
22	Kasajima ¹⁶⁾	2000	69/M	Peritonitis	cholecystectomy	Gb	(+)	Alive
23	Hatai ¹⁵⁾	2002	70/M	Peritonitis	cholecystectomy (laparo)	Gf		Alive
24	Yoshida ¹⁴⁾	2003	66/F	Peritonitis	cholecystectomy	Gb	(+)	Alive
25	Watanabe ¹³⁾	2004	69/F	GB perforation	cholecystectomy (laparo)	Gf	(+)	Alive
26	Yoshikawa ¹²⁾	2004	71/M	Peritonitis	cholecystectomy, C-tube	Gb	(+)	Alive
27	Masaoka ¹¹⁾	2005	82/M	Duodenal perforation	cholecystectomy, stoma	Gf		Alive
28	Masaoka ¹¹⁾	2005	74/M	Ileus, Colon perforation	cholecystectomy	Gb		Alive
29	Yasu ¹⁰⁾	2006	72/F	Duodenal perforation	cholecystectomy	Gb		Alive

Gb : body, Gf : fundus, Gn : neck, Gbf : body and fundus of the gallbladder

報告が5例(17.2%)に認められ、最近では腹腔鏡下手術で良好な結果を得た報告も認める¹³⁾¹⁵⁾。ただ

し、臍胆管合流異常などに起因する可能性もあり得るため、手術の際には留意し、胆管異常の有無

の確認は必須と考える。

本疾患の穿孔の原因についてはいまだ明らかにされていないが、検索した報告例において摘出標本中に血栓を認めた症例は12例(41.4%)認め、胆嚢壁の虚血性変化に起因するとの報告が多い。ただし、それらの変化は病理組織学的にも穿孔部位近傍に限局していることが多い。穿孔部位は胆嚢動脈末梢の血管分布が疎となる胆嚢体底部がほとんどである。自験例における病理組織学的検査所見においても、微小血管の急性期梗塞により組織が凝固・壊死に陥り穿孔を来したのではないかと推測する。その成因については今後さらなる検討を要すると考える。

予後は炎症性胆嚢穿孔症例の死亡率5.2～28.6%⁴⁰⁾⁴¹⁾に対し、本疾患の報告例では他病死における1例を認めるのみで良好である²³⁾。その理由として、早期に手術が成されていること、非感染性胆汁であることによると思われる。経皮経肝胆嚢ドレナージなどによる改善例も認めるが、結果的に手術を要しており⁴²⁾、在院期間短縮の点からも腹膜炎の診断がつき次第、早急な1期的手術を行うべきと考える。

上腹部痛を主訴とし、free airを伴わない腹水貯留を認める急性汎発性腹膜炎症例では、若年者においても本疾患を念頭におくべきであると考えられた。

本症例の要旨は、第62回日本消化器外科学会定期学術総会(2007年7月、東京)において発表した。

文 献

- 高橋利幸, 加藤紘之: 特発性胆嚢穿孔。肝・胆・膵 **33**: 771—774, 1996
- 石坂克彦, 中村 学, 中藤晴義: 特発性胆嚢穿孔。別冊日本臨床, 領域別症候群シリーズ。肝・胆道系症候群肝外胆道編。日本臨床社, 大阪, 1996, p477—481
- 羽子田正喜, 柿崎真吾, 篠田徳三: 胆汁性腹膜炎をきたした特発性胆嚢穿孔の1例。外科診療 **27**: 1240—1243, 1985
- Duncan J: Gangrene of the gallbladder; extravasation of bile; peritonitis; death. North J Med **2**: 151—153, 1844
- Slaubaugh IJ: Perforation of the gallbladder: report of a case and review of the literature. J Am Osteopath Assoc **83**: 733—737, 1984
- Roslyn J, Busuttil RW: Perforation of the gallbladder: a frequently mismanaged condition. Am J Surg **137**: 307—312, 1979
- Williams NF, Scobie TK: Perforation of the gallbladder: analysis of 19 cases. Can Med Assoc J **115**: 1223—1225, 1976
- Fletcher JAG, Ravdin IS: Perforation of the gallbladder. Am J Surg **81**: 178—185, 1951
- Niemeier OW: Acute free perforation of the gallbladder. Ann Surg **99**: 922—924, 1934
- 安井應紀, 塚本文仁, 今 博: 特発性胆嚢穿孔の1例—本邦報告29例のまとめ—。日消外会誌 **39**: 1391—1396, 2006
- 正岡直子, 池尻真康, 広原 鐘: 特発性胆嚢穿孔の2例。日臨外会誌 **66**: 462—467, 2005
- 吉川 智, 岩瀬和裕, 檜垣 淳ほか: 胆嚢壁内動脈奇形の並存が認められた特発性胆嚢穿孔の1例。日消外会誌 **37**: 1407—1411, 2004
- 渡辺 誠, 高村光一, 後藤 学ほか: 超音波検査にて診断した特発性胆嚢穿孔の1例。日臨外会誌 **65**: 1646—1649, 2004
- 吉田 誠, 宮永克也, 打波 大ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例。消外 **26**: 1535—1539, 2003
- 畑 倫明, 村尾佳則, 則本和伸ほか: 緊急腹腔鏡にて診断・治療した特発性胆嚢穿孔の1例。日臨外会誌 **63**: 1773—1776, 2002
- 笠島浩行, 西澤雄介, 野田頭達也ほか: 微小血栓が原因と考えられた特発性胆嚢穿孔の1例。日臨外会誌 **61**: 3321—3325, 2000
- 藤井弘通, 徳山彰俊, 大場一輝ほか: 特発性胆嚢穿孔による汎発性腹膜炎の1治験例。外科 **62**: 842—844, 2000
- 仁科雅良, 藤井千穂, 高田伸彦ほか: 胆汁性腹膜炎をきたした特発性胆嚢穿孔の1例。外科 **61**: 447—449, 1999
- 池谷朋彦, 津田基晴, 上田哲之: 特発性胆嚢穿孔の1例。日臨外会誌 **59**: 2665—2668, 1998
- 佐藤達郎, 中井亮雄, 松浦 豊ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例。日臨外会誌 **59**: 501—505, 1998
- 長谷川誠, 和田信昭, 小沢邦寿ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例。本邦報告30例の検討と共に。日腹部救急医会誌 **18**: 339—343, 1998
- 中澤久仁彦, 松尾 聰, 梅北信孝ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例。日臨外医会誌 **58**: 2637—2640, 1997
- 御江慎一郎, 神殿 哲, 大塚一成ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例。日臨外医会誌 **56**: 2677—2680, 1995
- 松本 勲, 平野 誠, 斉藤 裕ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例。日臨外医会誌 **56**: 2673—2676, 1995
- 小池能宣, 福富 京, 菊池一公ほか: 特発性胆嚢

- 穿孔の1例. 札幌病医誌 54 : 233—235, 1994
- 26) 垣迫健二, 桑原亮彦, 多田 出ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例. 日臨外医会誌 55 : 452—456, 1994
- 27) 山本隆行, 加藤俊夫, 竹内謙二ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例 本邦報告例の検討. 日臨外医会誌 54 : 2365—2368, 1993
- 28) 白鳥 隆, 渡辺泰博: 特発性胆嚢穿孔の1例. 日臨外医会誌 54 : 1871—1875, 1993
- 29) 佐伯好信, 熊本嘉隆, 青木克明ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例. 胆と脾 11 : 477—481, 1990
- 30) 高橋孝行, 三鍋俊春, 森 俊雄ほか: 胆嚢小動脈が原因と考えられた無石性非炎症性胆嚢穿孔の1例. 日消外会誌 22 : 2744—2747, 1989
- 31) 尾崎敏彦, 黒田浩光, 植田智樹ほか: 特発性胆嚢穿孔の1例. 胆と脾 10 : 1271—1274, 1989
- 32) 高宮有介, 古川俊隆, 本田善九郎ほか: 特発性胆嚢穿孔の1治験例. 日救急医会関東誌 9 : 110—111, 1988
- 33) 林 仁薫, 山口真彦, 大下 勝ほか: 高齢者の特発性胆嚢穿孔の一治験例. 滋賀医 8 : 131—134, 1986
- 34) 松峯敬夫, 広田英夫, 嘉和知靖之ほか: 胆嚢穿孔・胆汁瘻. 臨外 40 : 1169—1171, 1985
- 35) 小林 進, 小沢弘侑, 鈴木昭一ほか: 胃出血性潰瘍を続発した特発性胆嚢穿孔の1例. 臨外 36 : 1931—1935, 1981
- 36) 管 龍正: 胆嚢穿孔ニヨル胆汁性腹膜炎ニ就テ. 岡山医会誌 3 : 720—733, 1935
- 37) Chau WK, Na AT, Feng TT et al : Ultrasound diagnosis of perforation of the gallbladder : real-time application and the demonstration of a new sonographic sign. J Clin Ultrasound 16 : 358—360, 1988
- 38) Morgan TR, Kogan FJ, Amberg JR et al : Demonstration of free rupture of the gallbladder by endoscopic retrograde cholangiography. Arch Surg 121 : 1213, 1986
- 39) Hawkins HB, Cinti DC, Rao H et al : Diagnosis of spontaneous perforation of the gallbladder by Tc-99m DISIDA. Clin Nucl Med 9 : 708—709, 1984
- 40) Ong CL, Wong TH, Rauff A : Acute gallbladder perforation—a dilemma in early diagnosis. Gut 32 : 956—958, 1991
- 41) 片岡 徹, 廣本雅之, 趙 成坤ほか: 胆嚢穿孔症例の検討. 昭和医会誌 44 : 433—439, 1984
- 42) vanSonnenberg E, D'Agostino HB, Casola G et al : Gallbladder perforation and bile leakage. Radiology 178 : 687—689, 1991

A Case of Idiopathic Perforation of the Gall Bladder in a Young Adult Patient

Seiji Mega, Ryousuke Kawasaki, Kazuhiro Iwai,
Toshimichi Asano and Kazuaki Hazama
Division of Surgery, Oji General Hospital

A 24-year-old man admitted for sudden abdominal pain was found in abdominal computed tomography (CT) to have a fluid collection in the subphrenic space and laboratory data and abdominal signs suggestive of diffuse peritonitis necessitating emergency surgery. We found massive biliary ascites in the peritoneal cavity and bile leakage from the gallbladder and a 3mm defect in the body of the gallbladder near Hartmann's pouch. Duodenal serosa were normal. We conducted cholecystectomy and abdominal drainage. No gallbladder stones or thickening of the gallbladder wall were seen and culture of biliary ascites yielded no bacterial growth. The postoperative course was good and the man was discharged 10 days after surgery. Histologically, small thrombi occurred in the gallbladder wall near the perforation, but other parts of the gallbladder wall showed less inflammation. The definitive diagnosis was idiopathic perforation of the gallbladder.

Key words : idiopathic perforation, gallbladder, diffuse peritonitis

[Jpn J Gastroenterol Surg 41 : 424—429, 2008]

Reprint requests : Seiji Mega Division of Surgery, Oji General Hospital
3-4-8 Wakakusa-cho, Tomakomai, 053-8506 JAPAN

Accepted : October 29, 2007