症例報告

副交通胆管枝の1例

浦添総合病院外科

亀山眞一郎 伊志嶺朝成 蔵下 要
長嶺 義哲 古波倉史子 新里誠一郎

極めてまれな副交通胆管枝 (communicating accessory bile duct) の1例を経験したので報告する。症例は60歳の女性で、胆石手術目的で近医より当科紹介となり、腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した。手術所見・術中胆道造影および術後経静脈的胆道造影検査後CTで前下亜区域枝(B5)と胆嚢頸部との交通が確認され、副交通胆管枝と診断した。国内外の報告から副交通胆管枝および類似の所見を呈する症例を集計して検討したところ、さまざまな成因で発生した症例が混在しているものと推察された。また、腹腔鏡下胆嚢摘出術に際しては、胆嚢頸部周囲の慎重な剥離操作が肝要であることが再認識された。

はじめに

胆道系にはさまざまな走向異常が見られるが、副交通胆管枝 (communicating accessory bile duct; 以下, CABD) は極めてまれである。今回、我々は胆石症に対して腹腔鏡下胆嚢摘出術を行い、手術所見・術中胆道造影および術後経静脈的胆道造影検査後CT (以下, DIC-CT) によってCABDと診断した1例を経験したので報告する。

症 例

症例: 60歳, 女性

主訴: 右季肋部痛

既往歴: 特記すべきことなし。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 10年前から胆石を指摘されていたが、無症状で結石も小さかったため近医で経過観察されていた。今回、痛みが出現し、結石も増大傾向を認めたため当科に紹介となった。

入院時現症: 身長148cm, 体重56kg, 体温36.3℃, 血圧122/74mmHg, 脈拍66回/分, 貧血・黄疸は認めず、腹部は平坦で肝・脾臓を触知しなかった。

血液生化学検査所見: WBC 3,900/ μ l, RBC

505 $\times 10^4$ / μ l, Hb 15.2g/dl, Ht 45.2%, Plt 24.5 $\times 10^4$ / μ l, T-Bil 0.7mg/dl, AST 23U/l, ALT 21U/l, ALP 335U/l, LDH 176U/l。炎症所見および肝胆道系酵素の異常は認めなかった。

腹部超音波検査: 胆嚢内に5~10mm大の胆石を多数認めた。

MRCP: 総胆管から分岐する枝にらせん構造と考えられる所見を認めたため、これを胆嚢管と判断した。また、胆嚢頸部から頭側に向かっている部分が見られたが、胆嚢漏斗部から胆嚢管への移行部が屈曲しているためにこのように見えているものと考えた。したがって、胆嚢管分岐形態に異常はないと考えていたため、この時点ではCABDと診断することはできなかった (Fig. 1)。

手術所見: 胆嚢管を露出して周囲を剥離していくと、胆嚢と胆嚢床の間に剥離困難な部位を認めた。そこで、胆嚢を順行性に剥離しながらよく観察すると、胆嚢頸部と胆嚢床の間に異所性胆管と考えられる管を認め、胆嚢に開口している区域枝あるいは肝内胆管と交通している胆管が疑われた (Fig. 2)。肝十二指腸間膜から透見される総胆管との位置関係から、この胆管が総肝管である可能性は低いと考えられたが、確認のため異所性胆管と考えられる部分に造影カテーテルを挿入して術中胆道造影を行った。すると、前下亜区域枝 (以下、

Fig. 1 MRCP showed a branch which diverged from the common bile duct (arrow). It seemed the cystic duct because it had a spiral structure. It was not possible at this time to diagnose the CABD.

B5) を介して胆道全体が造影された (Fig. 3). 異所性胆管と胆嚢管の間は造影されなかったが、造影カテーテル挿入時に異所性胆管と胆嚢管の合流部を縛りこんだためか、閉塞しているためなのかは不明であった。異所性胆管を結紮すると B5 の通過障害を来すことが危ぐされたため、異所性胆管と胆嚢頸部の合流部より末梢で結紮して切離した。

DIC-CT：退院後に外来で DIC-CT を施行したところ、異所性胆管と B5 との交通が明瞭となった (Fig. 4)。

以上の所見から、この異所性胆管は B5 と胆嚢頸部を交通する CABD と考えられ、胆嚢摘出前は CABD の存在によって肝門部の胆管が環状構造を呈していたと考えられた (Fig. 5)。

考 察

Goor ら¹⁾は一定の肝区域をドレナージせず、主要胆管の間を交通する胆管を CABD と名づけ、4 型に分類した (Fig. 6)。その後、Couinaud²⁾はこの分類に 1 型を加えて 5 型として報告しており (Fig. 7)、二村は CABD を副交通胆管枝と訳している。自験例は、Goor 分類の F3、Couinaud 分類の type d に相当すると考えられた。

医中誌 Web (1983~2007 年 6 月) と PubMed を用いて、「副交通胆管枝」および「Communicating accessory bile duct」をキーワードとして検索したところ、現在までの報告は 9 件 (12 例) のみ

Fig. 2 Operative findings revealed an aberrant bile duct between the gall bladder neck and the gall bladder bed. ABD : aberrant bile duct, CD : cystic duct, GBN : gall bladder neck.

であった。このうち、胆管像が呈示されている症例は 6 例認められた^{3)~7)}。しかし、2002 年に西村ら³⁾が CABD の 2 例を報告する前には本邦での報告例はなく、以後に報告例が散見されるようになってきている。したがって、それ以前には別の胆道走向異常として報告されている可能性があるため、さらに「重複胆管」「重複総胆管」「重複総肝管」「duplication of bile duct」「double common bile duct」「double hepatic duct」などの用語でも検索を行った。すると、肝門部の胆管が環状構造を呈していて本例と画像上の類似性が認められる症例が 15 例見つかり、このうち胆管像が呈示されているものは 12 例であった^{8)~19)}。諸家も同様の集計を行っているが³⁽⁶⁾⁷⁾、これらには重複胆嚢管との鑑別が困難な症例や抄録のみで詳細がわからない症例も含まれていたため、胆管像が呈示されていて画像による検証が可能な 18 例と自験例を加えた 19 例を対象として検討した (Table 1)。

平均年齢は 49.7 歳、男女比は 1 : 2 と女性に多く認めた。内わけは、Goor 分類の F1 : 1 例 (5.3%)、F2 : 5 例 (26.3%)、F3 : 2 例 (10.5%)、F4 : 3 例 (15.8%)、分類不能 : 7 例 (36.8%) であった。また、Couinaud 分類では、type a : 4 例 (21.1%)、type b : 1 例 (5.2%)、type c : 5 例 (26.3%)、type d : 2 例 (10.5%)、type e : 1 例 (5.2%)、分類が不能あるいは困難な例が 6 例

Fig. 3 Operative cholangiograms from the aberrant bile duct showed the all biliary system through the anterior inferior duct (B5). ABD : aberrant bile duct, CD : cystic duct.

(31.8%)であった。以上のように、分類が可能だった例では、Goor分類のF2, Couinaud分類のtype cに相当する型が最も多かったが、どの型とすべきなのか判断が困難な例が複数認められた。また、左肝管と総胆管が交通する例や総肝管と総胆管が交通する例など、これらの分類では分類不能な型も認められた。

肝胆道系の発生は、胎生3週末から4週初めに内胚葉性上皮芽である肝芽(肝憩室 hepatic diverticulum)が前腸末端に形成されることによって始まる。肝芽はpars hepaticaとpars cysticaに分かれ、pars hepaticaから肝細胞索が横中隔内に侵入して肝実質と肝内胆管および左右肝管が形成される。Pars cysticaからは胆嚢管および胆嚢が形成される。その間に、肝窩と前腸の交通部が狭小化して総胆管・総肝管となる。6週頃から原始総胆管の末端から内腔形成が始まり、8週を過ぎて肝門部に達すると、肝細胞から肝内胆管となる原基が形成される。そして、形成された肝内胆管と肝外胆管は胎生9週頃に両者の内腔が交通し、10週には完成するとされている²⁰⁾²¹⁾。すなわち、現在では肝内胆管と肝外胆管は発生学的には全く独立して形成されると考えられている。

CABDの成因は明らかではないが、Couinaud²⁾は「肝門部胆管や主要な胆管に存在する鞘小管(vaginali ductuli)が異常に発達してできたと説明できるかもしれない」と述べている。しかし、今回の集計では、環状構造を示す胆管から各区域枝が放射状に分岐している例³⁾¹⁵⁾など、鞘小管の異常発達では説明しにくい症例も認められた。さらに、諸家も述べているように、環状構造を形成している各胆管の太さがほぼ同じでどの胆管をCABDとすべきか判断が困難な症例も認められた⁵⁾⁷⁾¹²⁾¹⁷⁾。このような症例に対して、もともと150~270μmほどしかない鞘小管が総肝管や左右肝管と同程度の太さにまで発達してできたと説明することには疑問を感じる²²⁾。これらの症例は、発生段階で肝内胆管と肝外胆管が接合する時期に異常な交通を生じて発生した可能性があると考えられる。また、総胆管嚢腫を合併している例¹⁷⁾²³⁾も複数認めていることから、同じ時期に形成された異常も疑われる。総胆管嚢腫は肝外胆管内腔形成前のsolid stageに内腔上皮を形成する細胞群が過増殖することによって生ずると考えられており²¹⁾、その後の内腔形成過程におけるrecanalizationに異常を来したために環状構造を呈したとい

Fig. 4 DIC-CT demonstrated clearly the communication to B5 from the aberrant bile duct. ABD : aberrant bile duct.

う可能性も考えられる。このように、さまざまな成因が考えられ、肝門部の胆管が環状構造を呈しているという共通点はあっても、異なった成因で発生した症例が混在している可能性を否定できない。すなわち、従来 CABD 以外の肝外胆道走向異常として報告された症例の中に CABD が含まれている場合もあれば、最近 CABD として報告された症例の中に CABD とは異なる成因で発生した症例が含まれている可能性もある。したがって、

Fig. 5 Reproductive schema of the biliary system before surgery. A ringed structure of the biliary ducts at the hepatic hilum was seen. ASD : anterior segmental duct, ABD : aberrant bile duct, CD : cystic duct, GB : gall bladder.

Fig. 6 Classification of the communicating accessory bile ducts by Goor¹⁾.

Fig. 7 Classification of the communicating accessory bile ducts by Couinaud²⁾.

上述した左肝管と総胆管が交通する例や総肝管と総胆管が交通する例など既存の分類にない型は、

Table 1 Reported cases regarding communicating accessory bile ducts

No.	Author	Year	Age	Sex	Location of CABD	Combined disease	Goor	Couinaud	Reported abnormalities
1	Gibney ⁸⁾	1987	17	F	RHD-LHD	hepatolithiasis	F4	e	interhepatic duct
2	Takahashi ⁹⁾	1991	18	F	RHD-CD	hepatolithiasis	F2	c	accessory hepato-biliary duct
3	Marukawa ¹⁰⁾	1993	31	F	RHD-CD	DBD, PBMJ	F2	c	duplication of the common bile duct
4	Nomura ¹¹⁾	1994	(-)	(-)	RHD-CBD	(-)	unclassifiable	a	anatomical abnormality of the cystic duct
5	Takagi ¹²⁾	1995	47	M	CHD-CBD	acalculus cholecystitis	unclassifiable	unclassifiable	anomalies of the common bile duct
6	Häfner ¹³⁾	1997	39	M	RHD-LHD	liver abscess	F4	a or e subtype	interhepatic duct
7	Yoshida ¹⁴⁾	1998	50	F	RHD-CBD	GB stone	unclassifiable	a	accessory bile duct
8	Takaoka ¹⁵⁾	1999	55	F	R or LHD-CBD	GBC, PBMJ	unclassifiable	LSC or a or e	similar to double common hepatic duct
9	Koyama ¹⁶⁾	2000	43	F	CHD-RABD	GB polyp	F4	a or e subtype	double bile duct
10	Hayashi ¹⁷⁾	2001	53	M	LHD-CDC	CDC	unclassifiable	LSC or a	double common hepatic duct
11	Kamiya ¹⁸⁾	2001	68	F	RHD-CBD	GB stone	F2	c	similar to double common hepatic duct
12	Nishimura ³⁾	2002	52	M	PSD-ASD	GB・CBD stone・hepatolithiasis	F1	b	CABD
13	Nishimura ³⁾	2002	72	M	RHD-ACBD	HCC, GB・CBD stone	unclassifiable	a	CABD
14	Kobayashi ⁴⁾	2003	66	F	LHD-CBD	hepatolithiasis	LSC	LSC	CABD
15	Hashimoto ¹⁹⁾	2004	58	F	RHD-CBD	GB polyp, PBMJ	unclassifiable	a	double common hepatic duct
16	Takayama ⁵⁾	2004	46	M	ASD-CBD	GB stone	F3	d	CABD
17	Masaoka ⁶⁾	2005	48	F	RHD-CD	GB stone	F2	c	CABD
18	Sakamoto ⁷⁾	2006	72	F	RHD-CD	CPV	F2	c	CABD
19	Our case		60	F	AID-GBN	GB stone	F3	d	CABD

RHD: right hepatic duct, LHD: left hepatic duct, CD: cystic duct, CBD: common bile duct, CHD: common hepatic duct, RAHD: right accessory bile duct, CDC: choledochal cyst, PSD: posterior segmental duct, ASD: anterior segmental duct, ACBD: accessory bile duct, GBN: gall bladder neck, AID: anterior inferior duct, DBD: the duplication of bile duct, PBMJ: pancreaticobiliary maljunction, GBC: gall bladder carcinoma, HCC: hepatocellular carcinoma, CPV: carcinoma of the papilla of Vater, CABD: communicating accessory bile duct, LSC: left side communication type (= the type with an union of the left hepatic duct and the common bile duct)

真の CABD であれば分類に追加するべきであるが、類似した構造を有する症例を成因によって明確に分けることができない現在、新しい分類として提案しないほうが妥当であると考えられた。

このように、CABD を含む肝外胆道走向異常にはその成因などまだ不明な点が多く、今後の症例の集積によって明らかにされていくことが期待される。

今回、残念ながら術前に CABD と診断することはできなかったが、まれな肝外胆道走向異常を伴っているにもかかわらず、慎重な剥離操作によって術中胆管損傷を回避することができた。腹

腔鏡下胆嚢摘出術に際しては、胆嚢頸部周囲の慎重な剥離操作が肝要であることが再認識された。

なお、本論文の要旨は第 62 回日本消化器外科学会定期学術総会（2007 年 7 月，東京）で発表した。

文 献

- 1) Goor DA, Ebert PA: Anomalies of the biliary tree. Arch Surg **104**: 302—309, 1972
- 2) Couinaud C: 肝臓の外科解剖。二村雄次訳。第 1 版。医学書院。東京、1996, p74—75
- 3) 西村一宣, 松尾英生, 玉榮 剛ほか: Communicating accessory bile duct (副交通胆管枝) の 2 例。日消外会誌 **35**: 1659—1663, 2002
- 4) 小林裕幸, 野崎英樹, 清水 稔ほか: 副交通胆管枝に合併した尾状葉肝内結石症の 1 例。日臨外会

- 誌 64 : 1198—1201, 2003
- 5) 高山祐一, 宮田完志, 米山文彦ほか: 副交通胆管枝の1例. 日消誌 101 : 783—787, 2004
  - 6) 正岡直子, 池尻真康, 広原鍾一: Communicating accessory bile duct に結石を認めた1例. 日消内視鏡誌 47 : 993—999, 2005
  - 7) 坂本英至, 長谷川洋, 小松俊一郎ほか: Communicating accessory bile duct の1例. 日消外誌 39 : 572—576, 2006
  - 8) Gibney RG, Nichols DM, Osborne JC et al : Interhepatic duct : a new biliary anomaly. Gastrointest Radiol 12 : 134—136, 1987
  - 9) 高橋 均, 岡村良邦, 秋沢直明ほか: 副肝管に合併した若年者肝内結石症の1例. 日消誌 88 : 1509—1514, 1991
  - 10) 丸川 治, 後藤 司, 北村彰英ほか: 膝・胆管合流異常を呈した重複胆管の1例. 胆道 7 : 615—621, 1993
  - 11) 野村俊之, 多田秀樹, 西原徳文ほか: 胆嚢管分岐異常の検討—主として腹腔鏡下胆嚢摘出術の術前検査として—. 胆道 8 : 3—8, 1994
  - 12) 高木哲之介, 赤坂義和, 荻原 登ほか: 肝外胆管奇形の2例. 三重医 39 : 161—168, 1995
  - 13) Häfner M, Schöfl R, Gangl A : A rare anomaly of the biliary tree : the interhepatic duct. Gastrointest Endosc 45 : 523—525, 1997
  - 14) 吉田修郎, 田島 充, 下田 貢ほか: 術前に副肝管を認めた胆石症の1例. 日臨外誌 59 : 1619—1622, 1998
  - 15) 高岡 亮, 久保田佳嗣, 小倉眞美ほか: 重複総肝管類似の稀な肝外胆管形態異常と膝・胆管合流異常を合併した1例. 胆道 13 : 124—128, 1999
  - 16) 小山祐康, 渡辺伸一郎, 土岐文武ほか: 稀な形態を示した重複胆管の1例. 胆と膝 21 : 94—95, 2000
  - 17) 林 秀和, 清水良一, 和田守憲二ほか: 膝・胆管合流異常に総胆管嚢腫と重複総肝管を伴った1例. 日臨外誌 62 : 772—776, 2001
  - 18) 神谷 諭, 寺崎正起, 岡本恭和ほか: 重複総肝管類似の胆管走行異型を認めた胆石症の1例. 日臨外誌 62 : 1269—1273, 2001
  - 19) Hashimoto M, Okuda C, Shida K et al : Double hepatic duct associated with anomalous pancreatobiliary ductal junction. Am J Surg 187 : 433, 2004
  - 20) Sadler TW : Langman's medical embryology. sixth edition. Williams & Wilkins, Baltimore, 1990, p237—259
  - 21) 松本由朗編著: 胆道形成異常の臨床. 第1版. 金原出版, 東京, 2003, p35—39
  - 22) Yamamoto K, Fisher MM, Phillips MJ : Hilar biliary plexus in human liver. A comparative study of the intrahepatic bile ducts in man and animals. Lab Invest 52 : 103—106, 1985
  - 23) 徳原克治, 浜田吉則, 渡邊健太郎ほか: 胆道拡張症に合併する Communicating accessory bile duct とくに肝管形成の工夫について. 日小外誌 40 : 487, 2004

A Case of Communicating Accessory Bile Duct

Shinichiro Kameyama, Tomonari Ishimine, Kaname Kurashita, Yoshitetsu Nagamine,
Fumiko Kohakura and Seiichiro Shinzato
Department of Surgery, Urasoe General Hospital

We report a rare communicating accessory bile duct. A 60-year-old woman referred for cholelithiasis surgery was found in laparoscopic cholecystectomy to have a communicating accessory bile duct and in postoperative computed tomography during drip infusion cholecystocholangiography (DIC-CT) and cholangiography showing the aberrant bile duct joined to the anterior inferior duct (B5) and the gall bladder neck. Previous reports suggested that cases of various origins had intermingled. Careful dissection around the gallbladder neck is very important in laparoscopic cholecystectomy.

Key words : communicating accessory bile duct, bile duct duplication, double hepatic duct

[Jpn J Gastroenterol Surg 41 : 540—545, 2008]

Reprint requests : Shinichiro Kameyama Department of Surgery, Urasoe General Hospital
4-16-1 Iso, Urasoe, 901-2132 JAPAN

Accepted : November 28, 2007