胆嚢に発生した迷入脾

東京女子医科大学消化器病センター

小林 政美 榊 原 宣 鈴木 博 孝
井 手 博 子 川 田 彰 得 押 淵 英 晃
小 坂 知一郎 市 川 武 矢 端 正 克

ABERRANT PANCREATIC TISSUE IN THE GALLBLADDER WALL

Masami KOBAYASHI, Noburu SAKAKIBARA, Hiroyoshi SUZUKI, Hiroko
IDE, Akinori KAWADA, Hideaki OSHIBUCHI, Tomoichiro KOSAKA,
Takeshi ICHIKAWA and Masakatsu YABATA

Institute of Gastroenterology, Tokyo Women's Medical College

はじめに

迷入脾または副脾は本来の位置にある脾臓のほかは脾臓組織、脾臓基質または脾臓胚芽がみられるものをいうが、胆嚢における迷入脾は1916年 Otshkin¹⁾ が報告して以来文献上わずかに19例というきわめてまれな疾患である。最近われわれは本邦で第1例目と思われる本症を経験したので若干の文献的考察を加えて報告したい。

症 例

性、年齢：男性（インドネシア人）、52才。

既往歴：30年前、虫垂切除施行。

家族歴：母：高血圧症、兄：心筋硬塞症、息子：白血病。

主訴：季助部痛

現病歴：昭和43年以来食後に季助部に鈍痛あり。昭和44年胃X線検査で胃炎といわれ薬物療法を行っていた。3カ月に一度位芥子、胡しょうなどの香辛料が入った食後に右季助部激痛出現、数日間ミルクを飲みつづけると軽快した。昭和49年3月インドネシアで胃X線検査の結果十二指腸腫瘍を指摘され当センターを訪れる。

入院時所見（昭和49年3月22日）：体格栄養中等度、意識明瞭、眼瞼結膜に貧血、眼球結膜に黄疸なし。頸部、鼠蹊部をはじめ全身のリンパ節触知せず。心・肺は理学的に異常所見なし。腹部は平坦であるが季助部に圧痛あり。肝・脾は触知せず。四肢正常。体温36.4℃、脈博84/min 整。血圧130~80mmHg。

検査成績：赤血球 $445 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、血色素14.6 g/dl、血小板 $23 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、血清蛋白 7.4 g/dl、A/G 1.6、MG 5、

GOT 16, GPT 10, LDH 295, Al. P 6.5, LAP 127, アミラーゼ 199, 総コレステロール 243mg/dl, 尿素窒素27.4mg/dl, クレアチニン 1.6mg/dl, 尿酸 8.8mg/dl, Na 146mEq/l, K 8 mEq/l, Cl 102mEq/l, 尿所見：比重 1.016, pH 6, 蛋白(±), 糖(-), ウロビリノーゲン(+), Fischberg 尿濃縮試験 1.024, PSP test 15分22%, 120分74%。

肺機能、心電図、胸部X線に異常所見みとめられない。

胃X線検査：慢性胃炎。

低緊張性十二指腸造影：十二指腸下行脚の中央部および内側で Papilla の直上に平面平滑な半球状の圧排像あり。圧迫および体位変換にて圧排像は増減する。

経口・経静脈併用胆嚢造影：胆嚢は造影良好、結石なし。総胆管 2.1cm 拡張あり。総胆管の末端像不明。

経十二指腸的脾管造影：脾内胆管の嚢腫状拡張とその上部で狭窄がみられる。嚢腫は十二指腸内へ陥入している。先天性総胆管嚢腫の Alonso Lei 分類のⅢ型に属する。総胆管の拡張みられる（写真1）。

エコーおよび動脈撮影では異常所見はみとめられない。

手術：昭和49年4月18日胆嚢摘出術および総胆管十二指腸吻合術施行。

摘出標本肉眼的所見：胆嚢は $4.0 \times 7.0\text{cm}$ ではほぼ羊梨状で粘膜は暗緑色でビロード状、胆石なし。胆嚢管は $2.0 \times 2.0\text{cm}$ で著明に肥厚し表面には蛇行した粗大な皺壁がある。固定後ヘマトキシリン染色、実体顕微鏡検査

写真1 先天性総胆管囊腫

写真2 実体顕微鏡所見

写真3 断面 ↑: 迷走脾を示す

写真4 組織標本(弱拡大)

↑: 迷入脾を示す

で嚢壁に囲まれた部分に深い陥凹がみられその中央に排出管がみられる(写真2).断面では米粒大の白色塊が散在してみられる(写真3).

組織学的所見:被覆上皮下および筋層内に排泄管と脾実質を伴った Heinrich II 型の脾組織が散在性に広く分布している.大きさは $17 \times 7 \times 3$ mmであつた.しかしランゲルハンス氏島はみられない.他の胆嚢粘膜は比較的保存されており,ロキタンスキー・アッシュは少ない(写真4).

術後経過:術後経過良好にて昭和49年5月18日退院した.

考 按

迷入脾の発生に関しては一般に先天性に基づいて説明されてきた²⁾³⁾. Cohnheim⁴⁾ は脾と同じように内胚葉の胎生期分化から成長する.つまり十二指腸背側壁の内胚葉から1個と総胆管の原基から膨出した1個と2個の原基が融合して脾を形成するが,この胎生期に何らかの發育異常があつて迷入脾が生ずるとのべている. A. Lau-

表1 胆嚢に発生した迷入腺

著者名	性別	年齢	症状および診断	存在部位	大きさ	組織学的所見	病理学的所見
1) Otskin (1916年)	男	8才	黄疸	十二指腸	微細	(-)	I型
2) V. Hedry (1924年)	女	6才	症状なし	十二指腸	10×8×7mm		*
3) Simon (1925年)	男	40才		膵部	小豆大		II型
4) Cogniaux (1928年)	女	39才		膵臓下縁部	3-4mm		III型
5) Jacobson (1940年)	女	19才	胆嚢炎の様な症状	(粘膜)	(5×0.15×0.16mm)		II型
6) Thomas (1940年)	女	34才	月経に続く上腹部痛	膵部	10×5mm		I型 (+)
7) Macdonald (1946年)	女	40才	右季肋部の痛	胆嚢			*
8) Barbosa (1946年)	男	2才	間歇的な黄疸	膵部	10×6mm		*
9) Tasende (1950年)	女	59才	黄疸	十二指腸			
10) Elfving (1954年)	男	15才		膵臓下縁部	10×8×8mm	2×小豆大	I型 (+)
11) Francini (1957年)	男	30才	黄疸と胆嚢腫大	十二指腸	40×30×25mm	(-)	II型 (+)
12) Jarvi (1962年)	女	16才	胆嚢腫大	膵部	10×5mm		(+)
13) Toison (1962年)	男	36才	8年 胆嚢と胆嚢腫大	膵部	7×7mm	(-)	I型 (+)
14) Toison (1962年)	女	32才	7年 胆嚢と胆嚢腫大	膵部	5×15mm		III型 (-)
15) Vidoff (1962年)	男	52才	胆嚢と胆嚢腫大	膵部	10×5mm	(-)	I型 (+)
16) Horanyi (1963年)	男	58才	10年 胆嚢と胆嚢腫大	膵部	6×8mm	(+)	*
17) Curtis (1969年)	女	19才	2週間 右上腹部の痛発作	膵部	15×10mm	2-3mmの塊	I型 (+)
18) Gregorio (1971年)	男	27才	胆嚢と胆嚢腫大	膵部	10×5mm		I型 (+)
19) Martinez (1973年)	男	47才	胆嚢と胆嚢腫大	膵部			*
20) 本症例 (1975年)	男	52才	6年 胆嚢と胆嚢腫大	膵部	7×7×3mm	(-)	II型 (+)

che⁵⁾ は組織異所発生についてのシエマを報告している。後天性としては Albrecht⁶⁾ および Artz⁶⁾ が胎生期の消化器官の表皮組織の多様な可能性をもつものでその細胞がある刺激にあつたと付属する線に該当する組織を生じるとのべ、King⁷⁾ と Mac Collum⁷⁾ も炎症性刺激の結果として腺組織は成人にも発達しえる可能性があると考えている。Boydon⁸⁾ はネコの、Higgins⁹⁾ はイヌの胆嚢に存在する迷入腺について発生における研究を報告している。本症例は胆嚢粘膜における炎症の程度もひどくなく、また先天性総胆管嚢腫 (Alonso Lei 分類のⅢ型) を合併していることより先天性発生説を支持したい。

1827年に Schultze¹⁰⁾ は回腸憩室に発生した迷入腺を初めて報告している。1859年に Klab¹¹⁾ は胃、回腸に発生した2症例の迷入腺について顕微鏡学的研究を伴う報告を行っている。その後迷入腺についての多数の報告があるが発生頻度について Pearson¹²⁾ は文献上 589例を集めこれは検死解剖の1~2%にあたる偶然の発見であり、開腹手術全体の1000分の2にすぎないとのべている。また発生部位としては十二指腸が最も多く30%、ついで胃25%、小腸15%、メッケル憩室6%、回腸3%その他胆嚢、総胆管、肝、脾などに発生がみられるとのべ

ている。本症例のごとく胆嚢に発生する迷入腺は1916年 Otskin²⁾ の最初の報告以来、本症例も含めてもわずか20例であり、本邦報告例はない。胆嚢における迷入腺の発生頻度について Gregorio¹³⁾ は0.81~1.1%、Faust und Mudgett¹⁴⁾ は0.81%と報告している。

迷入腺の構造について Heinrich¹⁵⁾ は1909年次の3型に分類している。I: bei der typisches, nach jeder Richtung hinvollig normales Pankreasgewebe mit Langerhanssche Zellenhanfen, Schaltstücken, und zentroazinaeren Zellen vorhanden ist. II: der die Langerhansschen Zellenhanfen fehlen, aber teilweise der übrige Drüsenbau erhalten ist. III: Wo es nur zur Differenzierung sekretorischer Zellen gekommen ist, die typischen Bildungen, Wie Langerhanssche Zellhanfen, zentroazinaere Zellen und Schaltstücke aber fehlen.

しかし1950年 Busard¹⁶⁾ は迷入腺について明瞭な腺構成要素のみとめられるものの他に、はつきりとした要素はなくても組織学的に Adenomoosis といわれるものも迷入腺の中に入れるべきであるとのべている。

胆嚢に発生した迷入腺20例^{(13)(17)~(31))}について検討すればつぎのとおりである。

性別についてみると男性9例、女性9例、不明2例であり男女間に差はみられない。年齢は最少19才、最高68才、平均40才であり、本症例は男性で53才であつた。

病期期間についてみると最低一週間から最長16年間で平均5.8年という極めて長い間患者は悩んでいる。

臨床症状および診断についてみると右季肋部痛、疝痛発作、黄疸などの症状を呈するがまったく不定であり、胆嚢X線検査で無柄の隆起がみられたという症例³¹⁾もあるが多くの症例でX線検査は陰性である。術前に診断された例はなく、大部分他の病名のもとに開腹手術され、その時に偶然発見されるか、検死解剖で発見されることが多い。迷入腺の臨床的存在を思い起こさせる臨床的な型は5つあると考えられる。まず第1に最も頻繁なのは単に発見されるだけの非特異的な形である。第2は腸閉塞や幽門閉塞症状、第3は消化管潰瘍および併発症(出血、穿孔)、第4は膵臓炎、膵臓癌、インシュリン過多症などの膵疾患、第5は胆嚢、総胆管炎および結石症または胆汁性腹膜炎である。本症例は第1の偶然に発見されたものに入ると考えられる。

存在部位については胆嚢のどの部位にもみられるが膵部7例、胆嚢管5例、体部1例、不明9例であり、組織学的には粘膜層が最も多く、本症例は胆嚢管の粘膜

層と筋層に存在した。

大きさは Froncini²⁵⁾ の40×30×25mmが最大であり平均11mm位の大きさである。本症例は17×7×3mmであった。

また結石の合併についてみると結石を合併しているもの10例、合併していないもの5例、不明5例であり本症例では結石は合併していなかった。

迷入脾を組織学的にみると Heinrich I型10例、II型5例、III型2例、不明3例でありI型がもつとも多かった。また内腔との連絡のみられるものは8症例であった。本症例はII型で内腔との連絡がみられた。他の胆嚢粘膜は多くのものが慢性胆嚢炎の像をしめているが、迷入脾よりの出血²⁸⁾や穿孔¹³⁾をきたした症例などでは急性の炎症像がみられている。

消化管の迷入脾から癌が発生したという報告もまれでなく^{32) 33) 34)}、久留^{35) 36)}は胃癌の2～3%は迷入脾を母地として発生したものであるとのべている。また胆嚢における迷入脾においても Froncini²⁵⁾ は癌性の増殖がみられたと記載している。しかし本症例では癌化はみられなかった。

迷入脾の治療は臨床的様相にかかっているが、他の疾患で開腹して偶然に腫瘤を発見した時も、出血や穿孔の原因、癌化などの問題を考えあわせれば積極的に切除することの意義は大きいと考えられる。

今回われわれは本邦第1例目と考えられる胆嚢の迷入脾を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Otshkin, A.D.: An accessoric pancreas locating in the wall of the ductus cysticus etc. (in Russian) Vratshebnaja Gazeta. 7, 114—119, 1916.
- 2) Thorsness, E.T.: An aberrant pancreatic nodule arising on the of a human gall bladder from multiple outgrowths of the mucosa. Anat. Rec. 77, 319—333, 1940.
- 3) Brauch, C.D. & R.E. Gross: Aberrant pancreatic tissue in the gastro intestinal tract. A report of 24 cases. Arch. Surg. 31, 200—224, 1935.
- 4) Cohnheim: 島田泰男他: 消化管迷入脾の4例, 日本外科宝函, 31: 474—477, 1962. より引用.
- 5) Lauche, A.: Die Heterotopien des ortsgeligen Epithels im Bereich des Verdauungskanal. Virchows Arch. path. Anat. 252, 39—88, 1924.
- 6) Albreche, H. & L. Arzt: Beitrage zur Frage

der Gewebsverirrung 11. Über die Bildung von Darmdivertikeln mit dystropischem Pankreas. Frankfurt. Z. Path. 4, 167—185, 1910.

- 7) King, E.S.J. & P. Mac Callun: Cholecystioid glandularis proliferans (cystica). Brit. J. Surg. 19, 310—323, 1931.
- 8) Boyden, E.A.: Atypical pancreatic bladder developed from an accessory pancreas, Anat. Rec. 23, 195—203, 1922.
- 9) Higgins, G.M.: An aberrant pancreas in the wall of the gallbladder of the dog. Anat. rec. 32, 149—161, 1926.
- 10) Schulze, J.: "Jansen, H.H. und E. Rothmund: Stenosierendes Nebenpankreas des Dunndarmes mit todlichem Invagination-sileus bei einem Saugling. Der Chirurg. 36(11), 518—520, 1965." より引用.
- 11) Klab: Gregorio, G.F. et al.: Aberrant pancreas in the gallbladder wall with acute perforation. Prensa. Med. Argent. 58, 1829—1834, Dec., 1971.
- 12) Pearson, S.: Aberrant pancreas Review of the literature and report of three cases, one of which produced common and pancreatic duct obstruction, Arch. of Surg. 63, 168—184, 1951.
- 13) Gregorio, F.G. et al.: Aberrant pancreas in the gallbladder wall with acute perforation. Prensa. Med. Argent. 58, 1829—1834, Dec., 1971.
- 14) Faust, D.B. und Mudgett, Ch. S.: Aberrant pancreas, with review of the literature and report of case. Ann. intern. Med. 14, 717—728, 1940.
- 15) Heinrich, H.: Ein Beitrag zur Histologie desjenigen akzessorischen Pankreas. Virchow Arch. Path. 198(3), 392—401, 1909.
- 16) Busard, T.M. and W. Walters: Heterotopic pancreatic tissue; report of case presenting symptoms of ulcer and review of recent literature, Arch. Surg. 60, 674—682, April 1950.
- 17) v. Hedry, N.: Nebenpankreas in der Gallenblasenwand, Bruns Beitr. Clin. Chir. 132, 570—572, 1924.
- 18) Simon, R.: Pankreassteine und Nebenpankreas an Hand eines Falles von Pankreolithiasis mit Pankreas accessorium an Pylorus. Diss. Heidelberg. 1925.
- 19) Cogniaux: Contribution a l'etude des pancreas aberrants. Arch. Franco Belges Chir. 31, 307—317, 1928.
- 20) Jacobson, S.J.: Accessory pancreas in the wall of the gallbladder, Arch. Path. (Chicago), 30, 908—910, 1940.
- 21) Mutschmann, P.N.: Aberrant pancreatic

- tissue in the gallbladder wall. *Amer. J. Surg.*, 72, 282—283, 1946.
- 22) Barbosa, J.J., M.B. Dockerty & J.M. Waugh: Pancreatic heterotopia. *Surg. Gynec. Obstet.*, 82, 527—542, 1946.
- 23) Tasende: Síndrome coledociano por pancreas aberrante. *Rev. Ass. Med. Argentina*. (Ref. francini.) 64, 136—139, 1950.
- 24) Elfving, G.: Heterotopie pancreatic tissue in the gall bladder wall. *Acta Chir. Scand.* 118, 32—36, 1959.
- 25) Froncini, G.: Su di un caso di pancreas accessorio deicodotti epatico, cistico ecoledoco in evoluzione carcinomatosa, *Atti Accad. Fisiocrit. Siena. Sez. Med.—Fis. Ser. 13*, 4, 691—715, 1957.
- 26) Jarvi, O. et al.: Heterotopic gastric mucosa and pancreas in the gall-bladder with reference to the question of heterotopias in general. *Ann. Acad. Sci. Fenn. (Med)* 106, Suppl. 22, 1—24, 1964.
- 27) Toison, G. et al.: Pancreas aberrant on to the gallbladder, 2 cases. *Arch. Mal. Appar. Dig.* 51, 871—875, 1962.
- 28) Vidgoff, I.J. et al.: Acute Hemorrhage from aberrant pancreatic tissue in the gallbladder, *Calif. Med.* 94, 317—319, May 1961.
- 29) Horanyi, J. et al.: Accessory pancreas in the wall of the gallbladder, *Magy. Sebesz.* 16, 290—294, Oct, 1963.
- 30) Curtis, L.E. and D.G. Sheahan: Heterotopic tissues in the gallbladder. *Arch. Path.* 88, 677—683, Dec., 1969.
- 31) Martinez, L.O. et al.: Aberrant pancreas in the gallbladder, *J. Can. Assoc. Radiol.* 24, 234—235, Sep. 1973.
- 32) 吉田富三: イレウスの原因?—副脾. 病室と研究室, 5(3): 90—92, 1948.
- 33) 大原 到他: 前癌性変化を示した胃副脾の1例. 外科領域, 2(9): 564—566, 1954.
- 34) Duff, G.L.: Primary carcinoma of the intra-ampullary portion of the duodenum with example of probable origin from aberrant pancreatic tissue. *Arch. Surg.* 46(4), 494—498, 1943.
- 35) 久留 勝: 前癌状態に就いて, 日外会誌, 53(8): 537—583, 1952.
- 36) 久留 勝: 迷入腺から生じた胃癌の1例に追加. 日外会誌, 58(2): 353, 1957.