

— 症例報告 —

狭窄部背側にリンパ節様の結節を認めた良性胆管狭窄の 1 例

前平 博充¹⁾, 塩見 尚礼¹⁾, 村上 耕一郎¹⁾, 北村 直美¹⁾, 飯田 洋也¹⁾, 赤堀 浩也¹⁾,
新田 信人¹⁾, 生田 大二¹⁾, 貝田 佐知子¹⁾, 三宅 亨¹⁾, 山口 剛¹⁾, 清水 智治¹⁾,
仲 成幸¹⁾, 石田 光明²⁾, 谷 眞至¹⁾

1) 滋賀医科大学 外科学講座

2) 関西医科大学 病態検査学講座

Benign biliary stricture with a dorsal nodular lesion resembling a lymph node;
A case report

Hiromitsu MAEHIRA¹⁾, Hisanori SHIOMI¹⁾, Koichiro MURAKAMI¹⁾, Naomi KITAMURA¹⁾, Hiroya IIDA¹⁾, Hiroya AKABORI¹⁾, Nobuhito NITTA¹⁾, Daiji IKUTA¹⁾, Sachiko KAIDA¹⁾, Tohru MIYAKE¹⁾, Tsuyoshi YAMAGUCHI¹⁾, Tomoharu SHIMIZU¹⁾, Shigeyuki NAKA¹⁾, Mitsuaki ISHIDA²⁾ and Masaji TANI¹⁾

1) Department of Surgery, Shiga University of Medical Science

2) Department of Pathology and Clinical Laboratory, Kansai Medical University

Abstract A 74-year-old woman was hospitalized with a liver abscess that was discovered during follow-up for biliary dilation and pancreaticobiliary maljunction. Abdominal computed tomography revealed a middle biliary stricture with a dorsal nodular lesion resembling a lymph node; we planned resection of the extrahepatic bile duct. However, subtotal stomach-preserving pancreaticoduodenectomy was performed because the dilated intra-pancreatic biliary duct could not be peeled from the pancreas. The resected specimen revealed that the form of the dilated biliary duct was multi-diverticular, and there was no mucosal change at the biliary stricture. Furthermore, fibrotic change was noted at the dorsal part of the biliary stricture. Histopathological assessment of the nodular lesion revealed inflammatory granulation, but malignancy was not evident in the resected specimens. In this case, the multi-diverticular form, the biliary stricture, and the nodular lesion developed because of repeated cholangitis. It was difficult to determine whether the biliary stricture in this patient was benign or malignant preoperatively, because of the appearance of the nodular lesion and the complications of congenital biliary dilatation and pancreaticobiliary maljunction.

Keyword benign biliary stricture, congenital biliary dilatation, pancreaticobiliary maljunction

はじめに

胆管狭窄の原因に関しては良悪性の鑑別が重要となる。切除された胆管狭窄の 8~43%が良性胆管狭窄であったとされているが^[1], 画像診断の進歩した現在でも術前に良性胆管狭窄の性格な質的診断は非常に困難である。今回われわれは, 診断および切除に苦慮し

た先天性胆道拡張症と膵・胆管合流異常を合併した良性胆管狭窄の 1 例を経験したので報告する。

症例

患者: 74 歳, 女性。

主訴: 発熱, 全身倦怠感。

既往歴: 高血圧, 高脂血症。

Received: December 12, 2016. Accepted: December 14, 2016.

Correspondence: 滋賀医科大学外科学講座 前平 博充

〒520-2192 大津市瀬田月輪町 hiro0103@belle.shiga-med.ac.jp

現病歴：2年前に総胆管結石に対して、Endoscopic Retrograde Cholangio-Pancreatography (ERCP) 検査，内視鏡的乳頭切開術を施行した．その際に総胆管および肝内胆管の嚢胞状拡張と膵・胆管合流異常を認め（図1 白矢印），ガイドワイヤー操作困難のために採石できずに終了した．その後は患者希望で，腹部超音波検査と Magnetic Resonance Cholangiopancreatography (MRCP) 検査で経過フォローされていた．今回，発熱および全身倦怠感を自覚したため当院を受診し，緊急入院した．

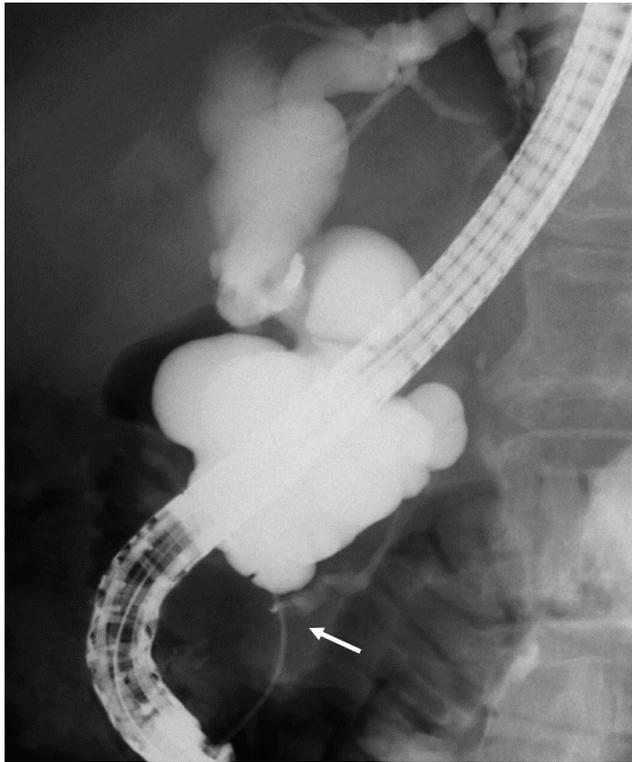


図1. 2年前 ERCP 検査所見．

初診時現症：身長 159cm，体重 55kg，体温 38.1℃．腹部は平坦，軟で圧痛は認めず，Murphy 徴候は陰性であった．

血液生化学検査所見：緊急入院時は WBC 16400 / μ l，CRP 4.47 mg/dl と炎症反応の上昇を認め，AST 352 U/l，ALT 286 U/l，ALP 1251 U/l， γ GTP 906 U/l，T-Bil 4.36 mg/dl，D-Bil 2.44 mg/dl と肝胆道系酵素の上昇を認めた．腫瘍マーカーは CEA 1.4 ng/dl，CA19-9 12 U/ml いずれも正常範囲内であった．また IgG4 64.5 mg/dl，C-ANCA 1.0 U/ml，P-ANCA 1.0 U/ml と正常範囲内であった．

入院時腹部造影 CT 検査所見：緊急入院時の腹部造影 CT 検査で，肝 S6 に ring enhancement を呈する占拠性病変を認め，さらに中部胆管の全周性の造影効果を伴う全周性の壁肥厚および同部位の胆管狭窄を認めた（図 2A, B 白矢印）．狭窄部胆管壁は比較的平滑であった．また，胆管壁外の胆管狭窄部背側には 18 mm 大の遷延性造影効果を受ける結節性病変を認めた（図 2A 白矢頭）．結節性病変は No.12b リンパ節である可能性があったが，確定はできなかった．胆管狭窄部の下流

側に嚢胞状拡張と，内部に結石を認めた（図 2C 白矢印）．



図2. 腹部造影 CT 検査所見．

胆管狭窄に伴う胆管炎および肝膿瘍と診断し，Endoscopic nasobiliary drainage (ENBD) チューブを留置し抗菌薬投与を開始した．しかし肝膿瘍の増大，およびそれに伴う意識レベル低下を認めたため，経皮的肝膿瘍ドレナージを追加した．全身状態が安定した後に，胆管狭窄について精査を施行した．

腹部 MRI 検査所見：胆管狭窄部背側に T1 強調画像でやや低信号，T2 強調画像でやや高信号，拡散強調画像で淡い高信号を呈する結節性病変を認めた（図 3A-C 白矢印）．周囲に明らかなリンパ節腫大は認めなかった．MRCP 検査では，中部胆管の急峻な狭窄とその上流胆管の紡錘状拡張，および狭窄部より下流の胆管の多発嚢胞状拡張を認めた（図 3D）．

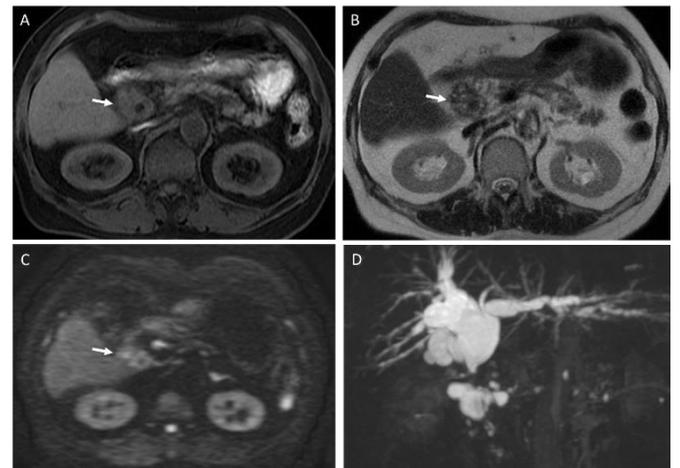


図3. 腹部 MRI 検査所見．

PET-CT 検査所見：中部胆管狭窄部背側に SUV max 5.67 の FDG 集積を認めた（図 4 白矢印）．

ENBD チューブ造影検査所見：中部胆管に急峻で粘膜面平滑な狭窄を認め（図 5 白矢印），その下流胆管の多発性嚢胞状拡張を認めた（図 5 白矢頭）．狭窄部の距離は 5mm であった．Intraductal Ultrasonography (IDUS) では，狭窄部に全周性の辺縁整で均一な壁肥厚を認めた（図 6 白矢頭）．狭窄部は生検やブラシ後細



図 4. PET-CT 検査所見.

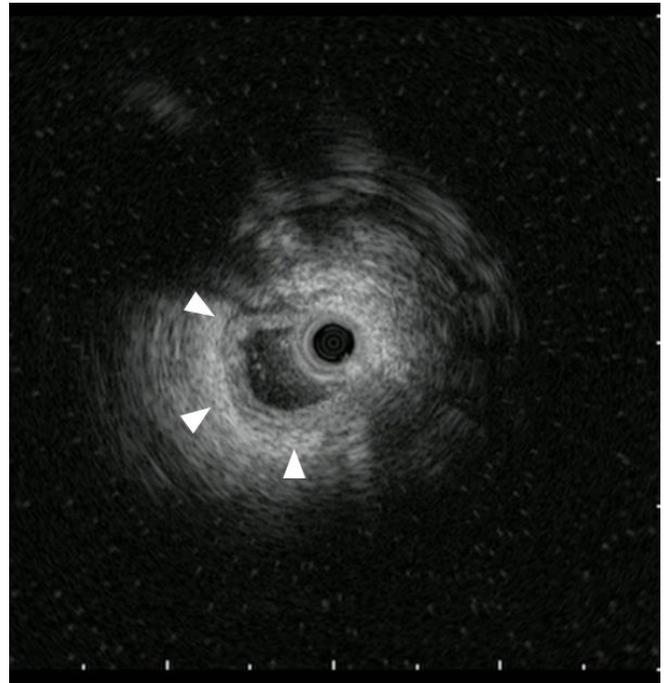


図 6. IDUS 所見.



図 5. ENBD チューブ造影検査所見.

胞診を施行したが、いずれも悪性所見を認めなかった。

入院 2 か月後腹部造影 CT 検査：中部胆管狭窄部の背側に認めていた結節性病変が、径 18mm 大から径 25mm 大へと増大していた（図 2D 白矢頭）。

以上より、先天性胆道拡張症と膵胆管合流異常を伴った中部胆管狭窄と診断した。ENBD チューブ造影や細胞診の所見から胆管癌の可能性は低いと考えたが、胆管壁外の結節性病変の増大を認めたことから、術式はまず狭窄部背側の結節性病変を術中迅速病理検査へ提出し、悪性所見のないことを確認の後、拡張胆管の完全切除を目的とした分流手術の方針とした。

手術所見：中部胆管背側に硬い結節性病変を認めた。結節性病変は胆管に強固に癒着し胆管からの剥離ができなかったため、結節の一部を術中迅速病理検査へ提出したところ癌陰性であった。当初は肝外胆管切除術

を施行する予定であったが、膵内胆管が膵実質へ炎症性に癒着し剥離困難であり、さらに剥離過程で主膵管を損傷したため、亜全胃温存膵頭十二指腸切除術を施行した。

摘出標本：下部から中部胆管に多発憩室状拡張を認め（図 7A 白矢頭）、同部に混合石を認めた。また、中部胆管で狭窄を認め（図 7A 白矢印）、狭窄部背側は線維性変化を認めた（図 7B 白矢印）。狭窄部および憩室様拡張胆管の粘膜面に明らかな腫瘍性病変や壊死性変化は認められなかった。

病理組織学的検査所見：胆管狭窄部の胆管粘膜にはびらんが生じていたが、壊死性変化は認められなかった。また、狭窄部背側には炎症性肉芽組織が形成されていたが（図 8A 矢頭）、リンパ濾胞構造は認められなかった（図 8B 矢印）。胆管拡張部では、筋層は著明に萎縮し、線維組織で置換され（図 8C 矢頭）、膵実質まで連続的に線維化が広がっていた（図 8D 矢印）。切除標本は全割して検索したが、いずれの部位にも悪性所見は認められなかった。また、形質細胞の浸潤は乏しかった。

術後経過：術後 6 日目に創部感染を認めたため開放ドレナージを行い、術後 29 日目に退院した。術後 2 年現在、肝膿瘍の再発や新たな結節性病変の出現、胆管癌の出現などは認めていない。

考察

胆管狭窄の原因に関してはその良悪性の鑑別が重要となるが、切除された胆管狭窄の 8~43%は良性胆管狭窄であったと報告されている^[1]。良性胆管狭窄をきたす原因として、IgG4 関連硬化性胆管炎や原発性硬化性胆管炎といった自己免疫性疾患、胆管結石などによる炎症性胆管狭窄、術後胆管狭窄、胆道外傷後の胆

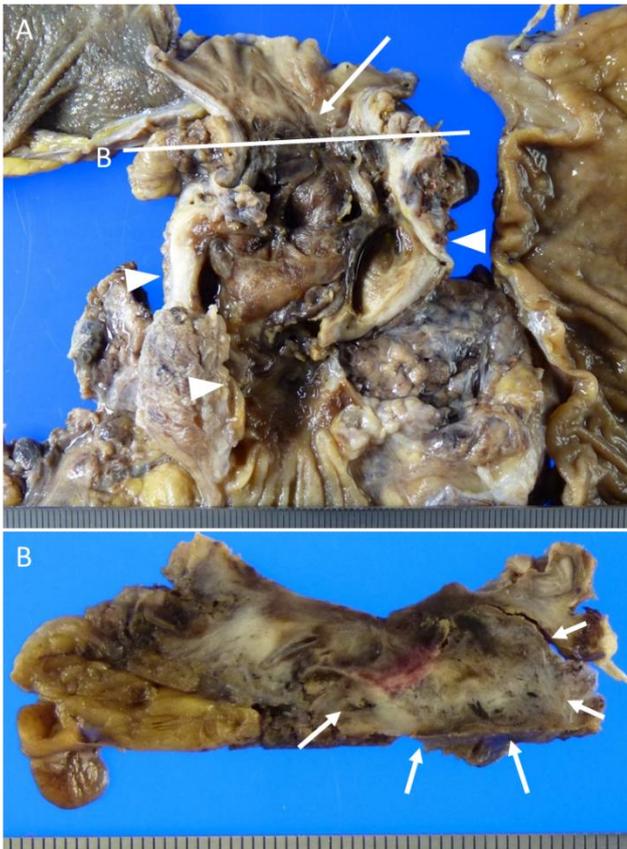


図 7. 摘出標本（固定後）.

管狭窄などが挙げられる。近年、超音波検査や CT 検査、MRI 検査、ERCP 検査などの診断技術が著しく向上したにもかかわらず、これらの中には良悪性を鑑別することが困難な症例が少なからず存在する。胆管狭窄の良悪性の鑑別のための画像所見として、CT や MRI では狭窄部が平滑か不整か、全周性か偏在性か、壁外浸潤の有無など、ERCP 検査では狭窄範囲の広さ、粘膜面の不整や変形の有無など、EUS や IDUS では悪性腫瘍は低エコーに描出され、外側高エコー層の連続性が断たれることなどが挙げられる^[2]。しかし粘膜下層を進展するびまん浸潤型胆管癌では明らかな粘膜不整を伴わないことがあり、注意を要する。また FDG-PET 検査における FDG の集積の程度も良悪性を鑑別することは難しく^[3]、画像診断のみでの鑑別は困難であると考えられる。胆汁細胞診や胆管生検も良悪性の診断に広く施行されているが、胆汁細胞診における問題点は、炎症の強い症例では細胞変性が強いため偽陽性率が高くなり、また胆管生検で良性症例を良性と確定診断することは容易ではない^[4]。以上より、術前に良性胆管狭窄を正確に診断することは極めて困難であると考えられる。

本症例の胆道拡張症は術前画像では総胆管の多発嚢胞状拡張に見え、切除標本では多発している憩室が連なって嚢胞状拡張しているように観察されたことから、戸谷 II 型の先天性胆道拡張症の可能性も考えられた。本症例では膵・胆管合流異常を合併していたが、通常戸谷 II 型先天性胆道拡張症では膵・胆管合流異常

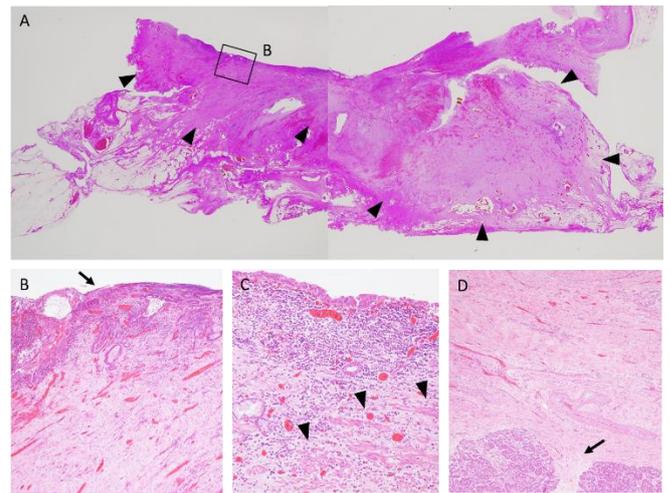


図 8. 病理組織学的検査所見.

は伴わない。本邦における戸谷 II 型先天性胆道拡張症の成人報告例を、医学中央雑誌で 1983 年から 2016 年でキーワード「先天性胆道拡張症」、「II 型」、「憩室」、PubMed で 1983 年から 2016 年でキーワード「congenital biliary dilatation」、「Alonso-Lej type II」、「diverticulum」で検索したところ、過去に 14 例認め、その中で膵・胆管合流異常を合併したものを 4 例認めた^[5-8]。これらの症例を分析したが、藪下ら^[5]は戸谷 I 型胆道拡張症の胆管壁が胆管炎などの影響を受けて憩室様になったと思われ、後天性要因に修飾されている可能性も考慮せねばならないとしている。また橋本ら^[6]は、戸谷 I 型と II 型の合併としているが、われわれは戸谷 IV-A 型と考えたい。原ら^[7]は、憩室形成型先天性胆道拡張としていることが、先天性胆道拡張症が後天的に憩室を形成したと考えていると思われる。渡辺ら^[8]は憩室状の胆道拡張の原因として胆管壁の筋層形成不全に、膵・胆管合流異常や 2 次的な結石の合併など複合した要因で多発憩室状変化をきたした可能性があると考えしている。すなわち、上記 4 例のいずれも本来の戸谷 II 型先天性胆道拡張症とは診断しがたいと考える。本症例においても、2 年前の ERCP 検査所見では憩室状拡張ではなく総胆管および肝内胆管の嚢腫状拡張であったこと、膵・胆管合流異常を合併していること、および総胆管結石も存在しており継続的な胆管壁障害が生じていたことを踏まえると、本症例の胆道拡張症は戸谷 II 型先天性胆道拡張症ではなく、戸谷 IV-A 型先天性胆道拡張症に膵・胆管合流異常や総胆管結石による炎症の繰り返しにより後天的に多発憩室状変化が形成されたと推察された。

本症例の胆管狭窄は、狭窄部胆管壁の性状や細胞診および胆管生検の結果から良性胆管狭窄が疑われたが、先天性胆道拡張症および膵・胆管合流異常を伴っていたこと、さらに狭窄部背側のリンパ節と思われる結節性病変が増大を認めたため、術前に悪性胆管狭窄を否定することができなかった。狭窄部背側の結節性病変は術中迅速病理検査で悪性所見を認めなかったが、膵内胆管周囲の線維化が強いために拡張胆管の膵からの

剥離が困難であり、亜全胃温存膵頭十二指腸切除術を施行せざるを得なかった。病理組織学的検査所見から想定するに、本症例では胆管憩室内に存在した結石による胆管炎の繰り返しにより形成された炎症性肉芽組織が結節性病変として描出され、さらに胆管炎の繰り返しにより形成された線維化が膵実質内まで及び、胆管周囲の剥離が困難になったと考えられた。また、先天性胆道拡張症と膵・胆管合流異常を合併していたために診断がさらに難渋することとなり、先天性胆道拡張症および膵・胆管合流異常を診断した時点で分流通手術を患者に強く勧めるべきであったと反省している。

結語

今回、われわれは診断ならびに切除に苦慮した先天性胆道拡張症と膵・胆管合流異常を伴った良性胆管狭窄の1例を経験した。胆管炎を繰り返すことにより、胆管の憩室状変化や胆管狭窄をきたしたり、転移リンパ節と鑑別困難な炎症性肉芽組織を形成することがあり、先天性胆道拡張症に併発することでその質的診断に苦慮するだけでなく、切除の難易度も高くなる可能性があることを認識しておく必要があると思われた。

利益相反：なし

文献

- [1] Buc E, Lesurtel M, and Berghiti J. Is preoperative histological diagnosis necessary before referral to major surgery for cholangiocarcinoma. *HPB (Oxford)*, 10(2):98-105, 2008
- [2] 村上冨, 味木徹夫, 岡崎太郎, ほか. 胆管癌と鑑別困難であった良性胆管狭窄の臨床病理学的特徴. *胆と膵*, 35:255-261, 2014
- [3] 古川敬芳. 胆道癌の FDG-PET 診断. *胆道*, 23:775-782, 2009
- [4] 川嶋啓揮, 廣岡芳樹, 伊藤彰浩, ほか. 良性胆管狭窄診断に対する経乳頭的胆管生検の有用性. *胆と膵*, 30:849-853, 2009
- [5] 藪下和久, 小西孝司, 泉良平. 胆管膵管合流異常と胆嚢癌を合併した Alonso-Lej 2 型 (憩室型) の先天性胆道拡張症の 1 症例. *胆と膵*, 7:1071-1076, 1986
- [6] 橋本琢生, 林裕之, 竜沢泰彦. 総肝管憩室を伴った先天性胆道拡張症の 1 例. *北陸外科学会雑誌*, 11:85-88, 1992
- [7] 原隆宏, 吉村信幸, 山科明夫, ほか. 膵管胆道合流異常, 総胆管結石を合併した憩室形成型先天性胆管拡張症の 1 例. *消化器外科*, 19:377-381, 1996
- [8] 渡辺雅男, 三浦紗智子, 寺下勝己, ほか. 膵胆管合流異常と胆管結石を合併した Alonso-Lej II 型先天性胆道拡張症の 1 例. *日本消化器病学会雑誌*, 105:1384-1389, 2008

和文抄録

症例は 74 歳, 女性. 膵・胆管合流異常および総胆管拡張に対して経過観察中に肝膿瘍を発症し入院した. 腹部 CT 検査で, 中部胆管狭窄と狭窄部背側にリンパ節様の結節性病変の出現を認めた. 肝外胆管切除術を予定したが, 拡張した膵内胆管と膵との剥離が炎症性癒着により困難で亜全胃温存膵頭十二指腸切除術を施

行した. 拡張胆管は多発憩室状拡張の形態をとり, 胆管狭窄部の粘膜変化は認めず, 背側には線維性変化を認めた. 病理組織学的検査所見では, 結節性病変は炎症性肉芽組織で切除標本に悪性所見は認めなかった. 本症例は繰り返す胆管炎により胆管の憩室状変化, 胆管狭窄, および胆管狭窄部背側に結節性病変が出現したと考えられた. 結節性病変の出現および先天性胆道拡張症と膵・胆管合流異常を合併していたことから胆管狭窄の良悪性の鑑別が困難となった症例と考えられた.

キーワード: 良性胆管狭窄, 先天性胆道拡張症, 膵・胆管合流異常