

症例報告

憩室部分切除後に嚢胞を形成した Alonso-Lej II 型先天性胆管拡張症の 1 例

仙台赤十字病院 外科

鈴木 秀幸 中川 国利 高舘 達之
深町 伸 小林 照忠 大越 崇彦

A Case of Congenital Choledochal Dilatation of Type II in Alonso-Lej's Classification which Formed Cyst after Partial Resection of the Diverticulum

Department of Surgery, Japanese Red Cross Sendai Hospital

Hideyuki SUZUKI, Kunitoshi NAKAGAWA, Tatsuyuki TAKADATE,
Shin FUKAMACHI, Terutada KOBAYASHI and Takahiko OGOSHI

要 旨

憩室部分切除後に嚢胞を形成した Alonso-Lej II 型先天性胆管拡張症の 1 例を経験したので報告する。症例は 75 歳の男性で、腹腔鏡下胆嚢摘出術の既往があった。胆嚢摘出術から 2 年 5 か月後に、憩室に結石を伴う先天性胆管拡張症に対して腹腔鏡下に憩室を部分切除した。憩室部分切除術から 5 年 2 か月後に黄疸を主訴として来院し、MRCP 検査では憩室と同じ部位に径 3.5 cm 大の嚢胞が存在し、総胆管を著明に圧迫していた。そこで腹腔鏡下に嚢胞を可及的に切除した。病理学的には嚢胞壁に上皮や筋層はなく、線維性結合組織であった。手術 1 年後の DIC-CT 検査では、嚢胞と同じ部位に径 2.5 cm 大の嚢胞が再発しており、総胆管を圧迫していた。しかし、嚢胞は増大せず無症状で肝機能も正常であるため、嚢胞切除後 5 年 11 か月現在経過観察中である。Alonso-Lej II 型先天性胆管拡張症では、遺残した憩室粘膜からの分泌物により嚢胞を形成する危険性があるため憩室を完全に摘出することが望ましい。

Key words: Alonso-Lej II 型先天性胆管拡張症, 総胆管憩室症, 腹腔鏡下総胆管憩室切除術, 腹腔鏡下嚢胞切除術

はじめに

Alonso-Lej II 型 (Congenital diverticulum of the common bile duct) の先天性胆管拡張症は、極めて稀な疾患である¹⁾。また通常は膵管胆管合流異常を伴わないため憩室切除術が行われ、予後は良好とされている^{2~4)}。

われわれは腹腔鏡下憩室部分切除術を施行した Alonso-Lej II 型先天性胆管拡張症例⁵⁾において、術後に嚢胞を形成した 1 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：75 歳，男性

主訴：黄疸

既往歴：2000 年 7 月当科において慢性胆嚢炎に対して，腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した。

現病歴：2002 年 12 月憩室に結石を伴う Alonso-Lej II 型先天性胆管拡張症に対して，腹腔鏡下に憩室を部分切除した⁵⁾。なお憩室は 2.5×2.0 cm 大であり，切除した憩室壁は 2.0×1.7 cm であった。手術 5 年 2 か月後の 2008 年 2 月黄疸を主訴として来院した。

入院時現症：身長 162 cm，体重 59.5 kg。眼球結膜に黄疸を認めたが，腹部は平坦，軟で腫瘍は触知しなかった。

入院時検査成績：T.Bil 4.3 mg/dl，AST 226 IU/l，ALT 253 IU/l，ALP 951 IU/l と肝機能障害を認めた。しかし，腫瘍マーカーは CEA 0.9 ng/ml，CA19-9 9 U/ml と正常値域であった。

腹部超音波検査：総胆管に接して，径 3.5×3.0 cm 大の嚢胞が存在した。

MRCP 検査：総胆管に接して嚢胞が存在し，



図 1. MRCP 検査（2008 年 2 月）
総胆管に接して嚢胞（矢印）が存在し，総胆管を著明に圧迫していた。

総胆管を著明に圧迫していた（図 1）。

以上の検査所見から，総胆管遺残憩室に起因した嚢胞による総胆管閉塞と術前診断し，腹腔鏡下嚢胞切除術を行うこととした。

手術所見：臍から 3 cm 右横の前回のトラカール挿入創で，小開腹下に最初のトラカールを挿入した。同部からの腹腔鏡観察下に，前回のトラカール挿入創 3 箇所にも再びトラカールを刺入した。胆嚢床や肝十二指腸間膜には大網，大腸および十二指腸の癒着を認めたが，鉗や超音波凝固切開装置を用いて剥離した。

圧排鉗子を用いて視野を展開し，肝十二指腸間膜の漿膜を縦に切開して総胆管の前面を露出した。引き続き，嚢胞を周囲から剥離した。嚢胞は総胆管の右腹側に存在し，穿刺すると清らかな液体 2 ml が吸引された（図 2）。内容液の検査では，T.Bil 0.2 mg/dl，アミラーゼ 5 IU/l，CEA 82.4 ng/ml，CA19-9 1,200,000 U/ml 以上，細胞診は class 2 であった。また造影剤の注入により嚢胞のみが造影された。そこで嚢胞を切開して内面を観察すると，総胆管が確認された（図 3）。嚢胞壁をできるだけ切除し，同部に持続吸引ドレーンを留置した。手術時間は 90 分，出血量は約 30 ml であった。

切除標本：切除した嚢胞壁は 1.4×1.2 cm の大きさで，壁は厚く内面は平滑であった（図 4）。

病理組織所見：嚢胞壁は線維性結合組織か

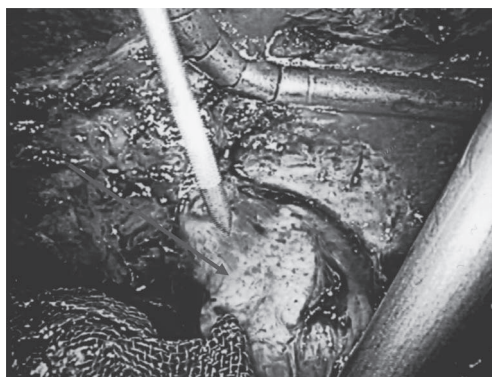


図 2. 腹腔鏡下手術所見
嚢胞（矢印）を周囲から剥離し，穿刺吸引した。



図3. 腹腔鏡下手術所見
嚢胞壁を切除すると、総胆管（矢印）が確認された。

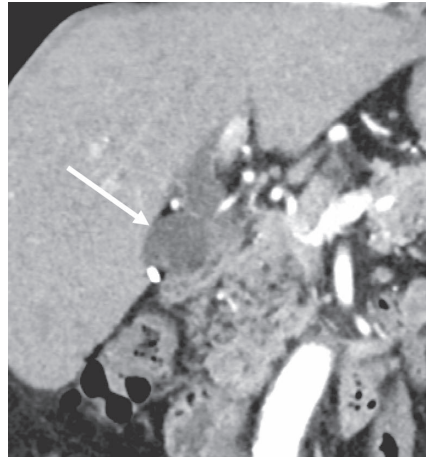


図5. 造影CT検査（2009年6月）
総胆管に接して径2.5 cm大の嚢胞（矢印）を認めた。

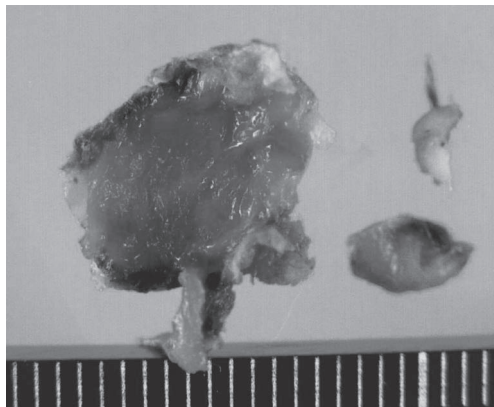


図4. 切除標本
嚢胞壁は厚く、内面は平滑であった。



図6. DIC-CT検査（2009年6月）
嚢胞（矢印）は総胆管を圧迫していた。

らなり、上皮組織や筋層は認めなかった。

術後経過：手術翌日から経口摂取を開始し、ドレーンは排液が少量なため術後2日目に抜去し、術後8日目に退院した。手術1年4か月後のCT検査では、術前と同じ部位に径2.5×2.0 cm大の嚢胞が存在し、総胆管を圧迫していた（図5, 6）。また手術5年5か月後のCT検査でも、径2.2×1.8 cmの嚢胞を認めた（図7）。しかし、無症状で肝機能も正常であるため、術後5年11か月現在外来にて経過観察中である（表1）。

考 察

先天性胆管拡張症はAlonso-Lejにより3型に分類され、II型は先天性胆管拡張症の約2%

と少なく稀な疾患である¹⁾。また先天性胆管拡張症では胆管炎、結石、胆道癌を発症する危険性が高いため、手術を行う必要がある^{2,3)}。頻度の高い Alonso-Lej I 型では膵管胆管合流異常を伴う例が多いため、主に拡張胆管を切除し胆道再建が行われている⁴⁾。一方、Alonso-Lej II 型の先天性胆管拡張症では、膵管胆管合流異常の頻度は少なく、原則的には憩室を単に切除するだけで十分とされている^{6~9)}。

自験例では腹腔鏡下にてできるだけ広範囲に憩室を切除したが⁵⁾、術後に嚢胞を形成し閉塞性黄疸をきたした。嚢胞を形成した理由としては、総胆管との交通による胆汁貯留があげられ

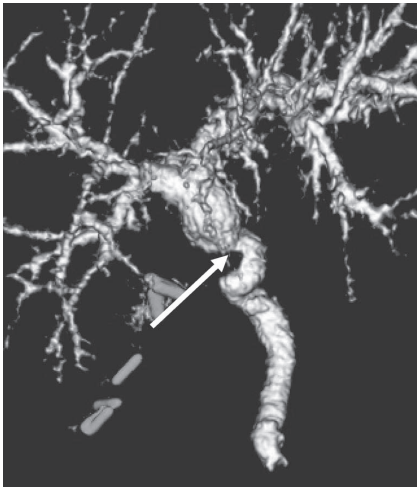


図 7. DIC-CT 検査 (2013 年 7 月)
径 2.2 cm 大の嚢胞 (矢印) が存在し、総胆管を圧迫していた。

る¹⁰⁾。しかし、嚢胞穿刺による造影では総胆管は造影されなかった。また吸引液は清明で、T. Bil 0.2 mg/dl であったことから、総胆管との交通による胆汁貯留は否定された。一方、嚢胞内容液の CEA や CA19-9 が高値であったことから、遺残憩室壁粘膜からの分泌液貯留が推察された。しかしながら切除した嚢胞壁には病理学的に上皮組織や筋層は認めず、確定診断には至らなかった。なお一般的に憩室部分切除術が行われているが、医学中央雑誌による 1983~2013 年の期間におけるキーワード「Alonso-Lej II 型先天性胆管拡張症」、「総胆管憩室症」の検索では、いまだ術後に嚢胞形成した例は報告されていない。

嚢胞は症状が特になければ、経過観察してもよい¹¹⁾。しかし、腹部膨満や腹痛などの症状がある場合には、外科的治療として超音波や CT ガイド下の嚢胞穿刺吸引やドレナージ、さらには嚢胞切除術や嚢胞消化管吻合術などが行われる。自験例では嚢胞により総胆管が圧迫され黄疸が生じたため、腹腔鏡下嚢胞切除術を施行した。3 回目となる腹腔鏡下手術であったが、腹壁と腸管との癒着は少なく容易に前回の創を用いてトラカールを挿入できた。また胆嚢床や肝十二指腸間膜の癒着剥離も比較的容易にでき、嚢胞を周囲から剥離できた。なお総胆管を含めた嚢胞切除術も考慮したが、良性疾患に対して手術侵襲が過大になることを危惧した。そこで遺残嚢胞壁からの分泌液貯留による嚢胞形成を避けるため、できるだけ広範囲に嚢胞壁を切除した。

表 1. 肝機能検査の推移

	2008.2	2009.6	2010.3	2011.1	2012.5	2013.7	
T.Bil	4.3	0.7	0.5	0.5	0.5	1.3	mg/dl
GOT	226	17	19	21	21	20	IU/l
AST	253	10	11	10	12	10	IU/l
ALT	951	171	163	188	169	172	IU/l
γ-GTP	1,840	22	24	26	20	26	IU/l
LDH	255	150	161	161	168	159	IU/l

しかしながら嚢胞壁切除1年後には嚢胞が再発し、画像検査では総胆管を圧排伸展していた。ただ症状は特になく肝機能も正常範囲のため、術後5年11か月現在経過観察している。なお黄疸などの症状が出た場合には、再度の嚢胞切除術やステント留置による内瘻術¹²⁾を行う予定である。

おわりに

Alonso-Lej II型先天性胆管拡張症に対する憩室部分切除術では、ごく稀ながら術後に嚢胞を形成する例がある。したがって憩室は広範囲に、できれば完全に摘出することが望まれる。

引用文献

- 1) Alonso-Lej F, Rever WB, Pessagno DJ: Congenital choledochal cyst, with a report of 2 and an analysis of 94 cases. *Int Abst Surg* **108**: 1-30, 1959.
- 2) Todani T: Congenital choledochal dilatation; classification, clinical features, and long-term results. *J Hep Bil Pancr Surg* **4**: 276-282, 1997.
- 3) Jablonska B: Biliary cysts-etiology, diagnosis and management. *World J Gastroenterol* **18**: 4801-4810, 2012.
- 4) 塚田一博, 吉田 徹, 澤田成郎, 他: 先天性胆道拡張症に対する胆嚢胆管切除および胆管消化管吻合術. *手術* **65**: 1449-1454, 2011.
- 5) 中川国利, 鈴木幸正: 腹腔鏡下に切除した Alonso-Lej II型先天性胆道拡張症の1例. *日外科連会誌* **29**: 269-272, 2004.
- 6) 山内希美, 尾関 豊, 角 泰廣, 他: Alonso-Lej II型先天性胆管拡張症の1例. *日消誌* **7**: 1048-1052, 2000.
- 7) 小林 孝, 黒崎 功, 尾松仁之, 他: 臍内胆管切除を施行した憩室型先天性胆道拡張症の1成人例. *胆道* **14**: 160-164, 2000.
- 8) 岡本廣拳, 杉田 昭, 深沢信悟, 他: 胆管結石症に合併した Alonso-Lej II型先天性胆道拡張症(憩室型)の成人例. *日消外会誌* **28**: 719-723, 1995.
- 9) Kono H, Ohtsuka T, Fujino M, et al: Type II congenital biliary dilatation with pancreaticobiliary maljunction successfully treated by laparoscopic surgery. *Clinical J Gastroenterol* **5**: 88-92, 2012.
- 10) 中川国利, 藪内伸一, 小林照忠, 他: 腹腔鏡下胆嚢摘出術における胆管損傷例の検討. *胆と膵* **30**: 403-407, 2009.
- 11) 深町 伸, 中川国利, 橋本知美, 他: 腹腔鏡下天蓋切除術を施行した感染性肝嚢胞の2例. *仙台赤十字病医誌* **22**: 77-81, 2013.
- 12) 峯 徹哉, 川口義明, 小川真実, 他: 胆管拡張をみたら—ERCPによるアプローチ. *消化器内視鏡* **25**: 206-210, 2013.

(No. 410 2014.1.30 受理)