

症例報告

後腹膜への特発性内胆汁瘻の一例

藤原 聡史¹⁾, 湯浅 康弘¹⁾, 竹内 大平¹⁾, 常城 宇生¹⁾, 松尾 祐太¹⁾,
森 理¹⁾, 藏本 俊輔¹⁾, 富林 敦司¹⁾, 沖津 宏¹⁾, 山下 理子²⁾,
藤井 義幸²⁾, 後藤 正和³⁾

¹⁾徳島赤十字病院消化器外科

²⁾同 病理診断科

³⁾つるぎ町立半田病院

(平成29年4月26日受付) (平成29年5月11日受理)

症例は70歳代の男性で、心窩部痛を主訴に当院へ救急搬送された。腹部CT検査では膵臓周囲の後腹膜領域に腹水貯留および炎症所見を認めた。理学所見および検査所見から急性膵炎が疑われ、入院にて薬物治療を開始した。その後も状態は急激に増悪を認め、腸管穿孔の可能性も疑われたため第2病日に緊急開腹術を施行した。開腹所見では膵臓、十二指腸周囲の後腹膜領域に多量の胆汁貯留を認めた。胆汁流出の原因は同定できず、腹腔内および後腹膜、総胆管ドレナージにて手術終了した。術後も状態改善は得られず、第55病日に永眠した。原因究明のため行った剖検所見では、分岐直後の右肝管から後腹膜へと通じる瘻孔形成を認めた。後腹膜胆汁瘻は非常にまれではあるが、その病態を理解することが救命において肝要であると考えられた。

はじめに

特発性内胆汁瘻とは自然発生的に形成された胆道系と周辺臓器との異常交通と定義され¹⁾、胆嚢十二指腸瘻等、さまざまな臓器への瘻孔例が報告されている。今回、後腹膜への特発性内胆汁瘻の一例を経験したため報告する。

症 例

症例：70歳代、男性。

主訴：腹痛。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

生活歴：アルコール多飲あり

現病歴：心窩部痛を訴え当院救急外来受診した。血液検査および腹部CT検査では特異的所見は認めず、対症療法にて経過観察していた。その後、症状の増悪を認め翌日救急搬送された。

現症：意識清明、体温 36.7℃、血圧 138/84mmHg
脈拍 97/分・整、SpO2 94% (room air)

腹部は心窩部中心に圧痛を認めたが、腹膜刺激兆候は認めなかった。

血液検査所見：WBC=7790/ μ L、CRP=4.43mg/dLと炎症反応の上昇を認めた。血中AMY=179U/Lと軽度上昇を認めた。

腹部CT検査所見：膵頭部から十二指腸水平脚周囲の後腹膜にかけて腹水貯留、脂肪織濃度上昇を認めた。

(Fig. 1 a, b)

入院後経過：

各種所見より急性膵炎が疑われ、同日入院し内科的加療

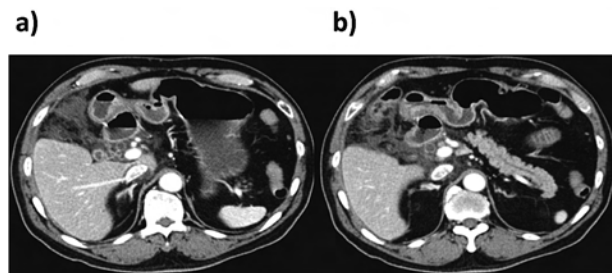


Fig1. 腹部造影CT
膵頭部から十二指腸水平脚周囲の後腹膜腔に液体貯留および炎症所見を認めた。膵実質の造影効果は保たれていた。

を開始した。その後も状態は増悪を認め、第2病日には急性循環不全および呼吸不全を認め、CRP=30.80mg/dLと炎症所見の増悪を認めた。腹部CT検査では後腹膜炎症像の拡大を認めた。しかしながら膵実質変化の増悪は乏しく、消化管の後腹膜への穿通の可能性も疑われ第2病日に緊急開腹手術を施行した。

手術所見：剣状突起下から臍下縁にかけての上腹部正中切開にて開腹した。十二指腸周囲の後腹膜領域は緑色調変化を認めた。Kocher授動を行い、同部を解放すると十二指腸下行脚から水平脚背側を中心に胆汁貯留を認めた (Fig. 2)。十二指腸、総胆管にはあきらかな穿孔部位は認めなかったが、胆汁の貯留部位より同部での微小穿孔の可能性が疑われた。可及的に貯留胆汁のドレナージを行い、同部にドレーンを留置した。消化管の減圧のため十二指腸内に経鼻胃管を誘導、留置した。また総胆管の減圧のため、総胆管内に T-tube を留置し手術を終了した。

術後経過：術後もドレーンからの胆汁排液は持続し、炎症反応上昇も遷延を認めた。腹部CT検査では後腹膜炎症所見の拡大を認めた。呼吸状態も改善は乏しく、人工呼吸器管理を継続した。上部消化管内視鏡検査での十二指腸造影では造影剤の漏出は認めなかったが、胆道造影では造影剤の留置ドレーンへの漏出を認めた (Fig. 3 a, b)。詳細な漏出部位は同定困難であったが、ドレナー

ジ不良を疑い、同部へENBDチューブを留置し追加ドレナージを行った。その後も状態改善は得られず、胆汁貯留部への感染に伴う敗血症の状態が持続し第55病日に永眠した。胆汁貯留の原因究明のため、病理解剖を施行した。

病理解剖所見：

十二指腸および総胆管には瘻孔は認めなかったが、分岐直後の右肝管周囲から後腹膜へと続く瘻孔を認めた。穿孔部の同定は困難であったが、瘻孔が右肝管周囲からの起始を認めており、同部の穿孔・瘻孔形成と診断した。瘻孔は複数に分岐しており、肝十二指腸間膜内を通り後腹膜脂肪内への交通を認めた (Fig. 4)。瘻孔内には約

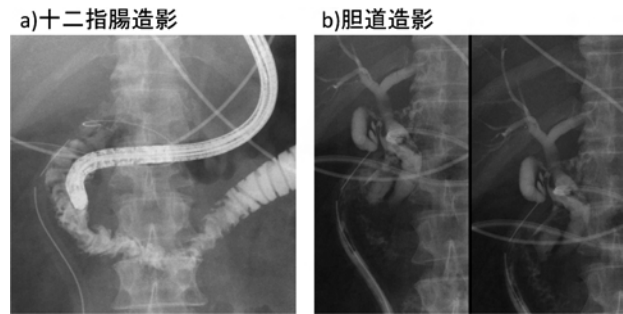


Fig3. 術後造影検査
明らかな造影剤の漏出は認めず

T チューブから造影すると腹腔内ドレーンへ造影剤流出あり



Fig2. 術中写真
Kocher 授動後、十二指腸背側を中心に後腹膜腔に胆汁貯留を認めたが、穿孔部の同定は困難であった。

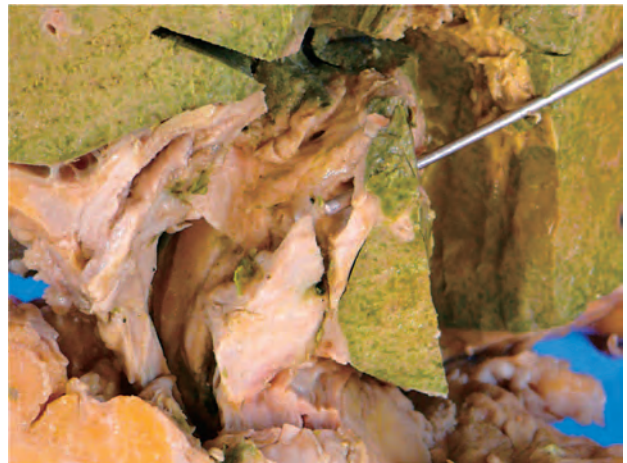


Fig4. 剖検標本
右肝管の分岐部に瘻孔と連続する穿孔部を認めた。
(ゾンデ挿入部)
瘻孔は複数本に分岐し後腹膜への連続を認めた。

1 mm の胆砂が認められたが、胆管および胆嚢内には結石は認めなかった。胆道および周囲組織には悪性腫瘍を疑う所見を認めなかった。また膵実質には自己融解・壊死所見を認め、急性膵炎と考えられた。肝門部と膵頭部は近接していた。また、大動脈、腹腔動脈およびその末梢動脈には高度な動脈硬化を認めた。そのため膵炎の炎症や胆砂、胆管の血流障害が胆道損傷の原因であることが疑われた。

考 察

内胆汁瘻とは胆道系と周辺臓器との異常交通と定義され¹⁾、その中でも外傷や医源性などの外部因子によらず、自然発生的に形成されたものを特発性内胆汁瘻と総称される。特発性内胆汁瘻の内訳としては、胆管十二指腸瘻が46.3%と最も多く、次いで胆嚢十二指腸34.4%、胆嚢胆管瘻9.3%、胆嚢結腸瘻8.3%と報告されている²⁾。前述のように特発性内胆汁瘻は胆管もしくは胆嚢から消化管への瘻孔形成例が多いとされているが、自験例では右肝管から後腹膜への瘻孔形成が認められた。医中誌で「胆汁瘻」、「後腹膜」のキーワードにて期間を設けず検索したところ、これまでに同様の症例は報告されておらず、極めてまれな病態であると考えられる。また術中所見以外での診断が困難であることも特徴のひとつである。自験例では内科的加療で救命が困難な状況であったことから、試験開腹の可能性も考慮した上で緊急手術を行った。本病態ではCT検査で特異的な所見に乏しく、緊急性が高い状況での術前診断は非常に困難であると考えられる。特発性内胆汁瘻の成因としては結石によるものが約90%前後と最も多いとされ、その他消化管潰瘍や悪性腫瘍、急性膵炎、肝膿瘍などの原因が認められている²⁻⁵⁾。自験例では胆道損傷の原因として胆石、炎症、虚血が可能性として疑われた。胆石に関しては瘻孔内に1 mm 程度の胆砂を認めている。単独で胆道穿孔をきたすほどの大きさとは考えにくいですが、これらの機械的刺激による胆道損傷の可能性が疑われた。炎症に関しては膵臓には自己融解・壊死所見を認め、急性膵炎による周囲への炎症が認められた。また膵頭部と肝門部の間は炎症のため短縮しており、通常より近接していた。患者の生活歴としてアルコール多飲が認められており、同部位には慢性的に炎症にさらされていた可能性が考えられた。胆管炎などの感染・炎症によって胆管構造の破綻をきたす可能性

に関しては知られており^{6,7)}、また急性膵炎に起因する消化管等の周辺組織への瘻孔形成例はこれまでも報告が散見されている⁸⁻¹¹⁾。そのため自験例においても膵炎による慢性および急性炎症の波及が胆管構造の破綻をきたし、内胆汁瘻の形成に影響した可能性も鑑別のひとつとして疑われた。その他、剖検時には大動脈や腹腔動脈および末梢動脈に渡り高度な動脈硬化所見も認めた。そのため虚血による胆管壁の脆弱化に起因する可能性も疑われた。自験例では剖検時には発症から約2ヵ月経過していることもあり、原因の確定は困難であった。しかしながら炎症や胆砂、虚血の併存により複合的に胆道損傷に至った可能性が疑われた。手術に関しては、術中には十二指腸もしくは総胆管までの胆道損傷を疑ったため結果として十分なドレナージを行うことができなかった。そのため持続する胆汁瘻および胆汁貯留より感染性膿瘍・敗血症を合併し、救命が困難な状況に陥った。今回は術前状態が重篤であり、可及的な手術終了が望ましいと考え術中の胆道造影や胆道鏡などの詳細な検査は施行しなかったが、それらにより高位での胆道損傷を疑うことができれば中枢での瘻孔閉鎖や、より効果的なドレナージが施行できた可能性がある。後腹膜への広範な胆汁瘻形成はまれであるが、致死率の高い重篤な病態である。そのため非常にまれな病態ではあるが、高位での胆道損傷の可能性を認識することが救命において肝要であると考えられた。

結 語

後腹膜への特発性内胆汁瘻の一例を経験した。まれではあるが、その病態を理解することが治療戦略において重要であると考えられた。

文 献

- 1) Naunyn, B.: Klinik der Cholelithiasis, F.C.W. Vogel, Leipzig: 139-141, 1892
- 2) 高枝正芳, 野田八嗣, 臼田里香 他: 特発性内胆汁瘻の本邦報告例の集計結果—とくに自験例を含む胆嚢結腸瘻を中心に—. 臨消内科, 6: 705-708, 1991
- 3) 下山孝俊, 福田豊, 藤井卓 他: 特発性内胆汁瘻の臨床—自験7症例と本邦報告例の検討. 外科, 44: 177-182, 1982
- 4) 畠山巧生, 長川達哉, 須賀俊博 他: 胆嚢結腸瘻に

- 進展した胆嚢癌の1例. 日消外会誌, 106 : 1063-1069, 2009
- 5) 北川喜己, 秋田昌利, 長谷川洋 他: 胆嚢十二指腸瘻・胆嚢結腸瘻を合併した胆嚢癌の1切除例. 日消外会誌, 23 : 791-795, 1990
- 6) 東平日出夫, 立山健一郎, 尾関豊 他: 後腹膜気腫像を呈した急性閉塞性化膿性胆管炎の1例. 日消外会誌, 33 ; 75-79, 2000
- 7) Fimmano, A., Rondinone, G., Miglio, R., *et al.*: Rare complications of biliary sepsis. *G. Chir.*, 19 : 96-102, 1998
- 8) 土井俊文, 若林直樹, 岩井直人 他: 総胆管および十二指腸に瘻孔を形成した臍仮性嚢胞の1例. 日消外会誌, 110 : 1288-1295, 2013
- 9) 笠島裕明, 森本芳和, 弓場健義 他: 結腸穿孔をきたした重症急性膵炎の1例. 日外科系連合誌, 37 : 314-319, 2012
- 10) 福岡恵子, 和泉才伸, 永瀬佑紀 他: 結腸瘻を形成した急性膵炎後膵膿瘍に対し超音波内視鏡下経胃的ドレナージが有効であった1例. *Gastroenterol. Endosc.*, 52 ; 1275-1280, 2010
- 11) 櫻井克宣, 塚本忠司, 清水貞利 他: 重症急性膵炎後の膵膿瘍に十二指腸穿孔を併発した1例. 日腹部救急医学会誌, 30 : 935-956, 2010

A autopsy case of biliary fistula to the retroperitoneal space

Satoshi Fujiwara¹⁾, Yasuhiro Yuasa¹⁾, Taihei Takeuchi¹⁾, Takao Tsuneki¹⁾, Yuta Matsuo¹⁾, Osamu Mori¹⁾, Shunsuke Kuramoto¹⁾, Atsushi Tomibayashi¹⁾, Hiroshi Okitsu¹⁾, Michiko Yamashita²⁾, Yoshiyuki Fujii²⁾, and Masakazu Goto³⁾

¹⁾Department of Surgery, Tokushima red cross hospital, Tokushima, Japan

²⁾Department of Pathology, Tokushima red cross hospital, Tokushima, Japan

³⁾Surgery, Handa hospital, Tokushima, Japan

SUMMARY

A seventies age man was admitted complaining of epigastric pain. Computed tomography of the abdomen showed the fluid collection and inflammation in the retroperitoneal space besides pancreas. We suspected acute pancreatitis, and started the treatment by the medications. However, the treatment was not effective. Because we suspected of perforation, we underwent the operation. In the operation, there was a large amount of bile in the retroperitoneal space. We performed intraperitoneal drainage because of uncertain cause. After the operation, he got worse, and died on the 55th day. The autopsy showed the biliary fistula at right hepatic duct to the retroperitoneal space. The biliary fistula to the retroperitoneal space was very rare case, therefore we must understand the pathological condition due to save the life.

Key words : retroperitoneal space, biliary fistula, acute pancreatitis