

悪性疾患を疑った下部胆管限局性良性狭窄の1例

近畿大学医学部第二外科学教室（主任：久山 健教授）

笠原 洋，山田 幸和，園部 鳴海，白羽 誠，久山 健

若草第一病院外科（院長：川合弘毅博士）

川 合 秀 治

〔原稿受付：昭和58年7月8日〕

A Case of Benign Segmental Stricture of the Distal Common Bile Duct Simulating A Malignant Stricture

YOH KASAHARA, YUKIKAZU YAMADA, NARUMI SONOBE, SEI SHIRAHARA
and TAKESHI KUYAMA

The Second Department of Surgery, Kinki University School of Medicine
(Director: Prof. Dr. TAKESHI KUYAMA)

SHUJI KAWAI

Surgical Service, Wakakusa Daiichi Hospital
(President: Dr. KOHKI KAWAI)

A 47-year-old male complaining of anorexia, emaciation and jaundice was admitted on March 23, 1981. Obstructing jaundice due to segmental stricture of the distal common bile duct was revealed. A malignant lesion was suspected by PTC and ERCP, however, CT, US and celiac angiography were not able to demonstrate malignancy. The guidewire during the maneuver of PTCD easily passed through the stricture into the duodenum. Histologic specimen obtained from the surgery of pancreato-duodenectomy showed chronic focal mild fibrous cholelithiasis without malignancy. His postoperative course was uneventful. Although this form of cholelithiasis is very rare, the clinical feature is similar to the malignant stricture or to the segmental type of primary sclerosing cholangitis. The differences among the preoperative diagnoses to evaluate the nature of stricture, and easy widening of the stricture by the guidewire of PTCD may indicate the presence of benign lesion. Useful pre- and intra-operative diagnostic techniques to rule out malignancy should be established in order to avoid excessive surgical intervention.

Key words: Benign segmental stricture of the distal common bile duct, Endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP), Percutaneous transhepatic cholangiography and drainage (PTC & PTCD), Primary sclerosing cholangitis (PSC), Focal chronic fibrous cholelithiasis.

索引語：良性限局性下部胆管狭窄，内視鏡的逆行性胆管膵管造影，経皮経肝胆道造影およびドレナージ，原発性硬化性胆管炎，限局性慢性線維化性胆道炎。

Present address: The Second Department of Surgery, Kinki University School of Medicine, Sayama-cho, Osaka, 589 Japan.

はじめに

閉塞性黄疸の患者に対して経皮経肝胆道撮影およびドレナージ (PTC & PTCD), 逆行性胆管膵管造影およびドレナージ (ERCP & ERBD) による診断と黄疸軽減手技の確立によって, 閉塞原因の精査と術前管理, 術式の選択などについての余裕が得られてきている. これらの造影上で胆管結石が否定された症例で下部胆管, あるいは膵内胆管に限局的狭窄がみられ, しかも壁の不整を伴う場合は膵頭部領域の悪性腫瘍がまず考えられ, 従って手術々式の選択も悪性腫瘍の根治を目的とするものとなる. しかし稀には極めて悪性狭窄に類似の病像を示しながら, 組織学的診断では良性であった例もみられ, このような良性例においてはまたそれに適応の術式が要求される.

私達は悪性の胆道狭窄と診断し, 膵頭十二指腸切除後の組織学的検索により限局性の胆道炎と判明の1例を経験したので, 術前諸検査により良性和確認し得たか否かなどの点を考慮に入れながら, 若干の考察を加えたい.

症 例

症例 MY 47歳 男性

主訴: 食思不振, るいそう, 黄疸発現

既往歴: 特記すべきものなし

家族歴: 父に胃癌

現病歴: 昭和55年の末より右上腹部痛を間歇的に来していた. 同56年2月, 全身倦怠感, 嘔気, 黄疸発現をみ, 肝炎として近医へ通院, 次第に食思不振, るいそう, 黄疸の程度増強がみられたため近医へ入院, 総



Fig. 1. Widening of the stricture of the distal common bile duct by a guidewire during PTCD.

Table 1. Preoperative Laboratory Data.

RBC (x10 ⁴)	422	Total P. (g/dl)	6.4
Hb (g/dl)	13.2	A/G	1.2
Ht (%)	37.8	Total Bil. (mg/dl)	18.3
WBC	8,300	Direct Bil.	16.2
Stab (%)	7	GOT (U/L)	50
Seg (%)	61	GPT	91
Lymph (%)	19	Alkaline Phos.	320
Urinalysis Bil.	(++)	LDH	350
Protein	(±)	CEA (ng/ml)	4.0

胆管の狭窄を疑われ、当院へ紹介された。

入院時所見・身要 162 cm, 体重 56 kg, 全身黄染著明, 頸部胸部に著作なく, 腹部も肝, 腎, 脾など触知せず, 腹水, 腫瘍その他の異常をみない。表在リンパ節触知せず, 皮膚に軽度の搔痕あり。

入院時検査所見: 血液生化学所見を Table 1 に示した。PTCD (Fig. 1) にて肝内胆管軽度拡張, 脾内胆管で閉塞をみたが, ガイドワイヤーで開通可能で, 造影剤の十二指腸排泄をみた。胆管末端部の 10 mm 余の不整狭窄を指摘された。ERCP (Fig. 2) で胆管末端部の 15 mm 長の著明な管腔の狭細化, 脾管は軽度の管腔不整以外著変なし, 十二指腸乳頭正常外見, 腹部超音波検査 (US) では肝内胆管拡張と胆嚢結石疑診であった。腹腔動脈撮影では著変を認めずとのことで, PTCD より反復した胆汁細胞診においても悪性腫瘍細胞はみられなかったが, 術前診断として悪性狭窄を考えた。

手術所見: 下部胆管癌疑診で 4 月 22 日 Child 法に準じて脾十二指腸切除施行, 狭窄部内腔と周囲に肉眼的に著変なく, 脾頭部にも異常をみず, 胆石の合併も



Fig. 2. The sketch of ERCP showing segmental narrowing of the distal common bile duct.

みられなかった。

病理組織学的所見: 狭窄部胆管周囲にリンパ球を主とする細胞浸潤と胆管壁の fibrosis, 平滑筋の減少を認める。これに近接して sinus reticulosis の極めて顕著なリンパ節が存在している。胆管粘膜上皮の剥脱の強い部分もみられる。脾には著変をみないとのことで chronic fibrous choledochitis と診断された (Fig. 3, 4)。

術後経過: 良好に経過し, 退院後は近医での通院観察とした。

考 按

良性の肝外胆管狭窄のうち最多のものは胆嚢摘出その他の胆道系手術に起因の総胆管損傷による外傷性 (医原性) 胆管狭窄といわれる^{6,11,32)}。外傷性狭窄以外の上部胆管良性狭窄には, いわゆる Mirizzi syndrome^{17,30)} や confluence stone³³⁾ などがあげられる。一方下部胆管の狭窄の場合, 良性では乳頭炎による狭窄^{1,28)}, 慢性脾炎の影響^{15,40)} が主体となる。これら以外の良性狭窄は稀であり, 下部胆管, 脾頭部癌などとの鑑別が必要となってくる。

自験例は胆道炎と病理組織学的に判定されたが, この場合にはいわゆる原発性硬化性胆管炎 (primary sclerosing cholangitis: PSC) との異同, 特にその focal or segmental type との鑑別が問題となる。PSC は 1924 年に Delbet¹⁾ により始めて報告され, Schwartz²⁷⁾ により診断基準がとり上げられ, さらに Meyers ら¹⁷⁾ により, 1) 進行性の閉塞性黄疸, 2) 胆石非合併, 3) 胆道手術の既往のないこと, 4) 胆管系全体の狭窄と肥厚, 5) 長期 follow-up による胆道系悪性疾患除外, 6) 肝生検による胆汁性肝硬変の否定, 7) retroperitoneal fibrosis, 潰瘍性大腸炎などの病変が胆道系に影響の場合を否定, の診断基準が示されているが, 今日では 4) に対して限局型の存在, 7) の併存は認められている。

PSC の造影所見として, 1) 狭窄: 胆管系全般にわたるものから, 一部に限局の型まで種々みられる, 2) "pruned tree appearance": 罹患の細胆管枝の閉塞を示す, 3) "beaded appearance": 胆管枝の局所的狭窄と拡張が交互に出現する, 4) 肝内胆管の fibrosis のため, 閉塞性黄疸があっても肝内胆管の拡張を生じ難い, などの特徴が述べられている¹²⁾。術中の胆管触診所見は諸家により cord, pencil, pipe-stem, thrombosed blood vessel などと表現され³⁾, 従来は術中造影所見が主体であったが, PTC や ERCP の普及により PSC

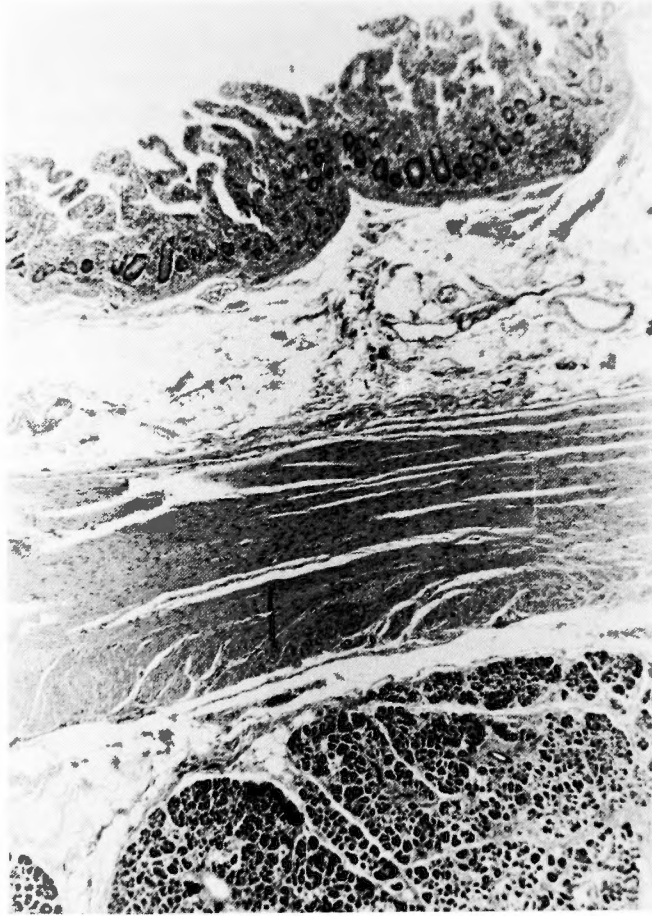


Fig. 3. Photomicroscopic specimen of the stricture showing mild chronic fibrous choledochitis without malignancy (H-E stain).

における胆管系の状態の把握は近年良好となっている^{1,3,14)}。

PSC の病理組織学的所見は、粘膜下と漿膜下に浮腫を伴う強い fibrosis と inflammation が認められ、肝組織には bile stasis と peripheral fibrosis を生ずるが、胆管粘膜にはさしたる所見はないとされる^{3,13)}。Lefkowitz¹³⁾によれば、罹患胆管の生検では厚い、慢性的の炎症性細胞浸潤と線維化がみられ、periluminal glands がこの fibroinflammatory reaction にとり囲まれ、胆管癌類似の様相を示すこともあるとされる。

定型的な PSC の診断は、原発性胆汁性肝硬変との異同を問題とするものもみられるが⁸⁾、通常は容易と思われる。しかし肝外胆管系の一部にのみ限局して segmental or focal type といわれる PSC を生じている場合があり、このような型の頻度は約 6%¹⁹⁾、約 20%

%³⁹⁾などといわれ、本邦では守田ら²⁰⁾の集計 27 例中の 4 例 (約 15%) が限局型であった^{3,31,34,35)}。Caroli and Rosner⁴⁾ は総胆管に限局的 chronic sclerosing cholangitis を、segmental sclerosing cholangitis のなかの sclerosing choledochitis と呼んでいるが、病理学的な検索は膵頭十二指腸切除をなし得た例などに限定されるために少数例にしかなし得ず、造影上の特徴は慢性肺炎による胆管狭窄に類似するが、手術により膵組織は正常であることが確認され、胆管壁の組織学的所見は線維化による肥厚であるとしている。

自験例においては術前 US で指摘の胆嚢内結石はみられず、胆嚢、胆嚢管とも通常の軽い炎症の組織像であり、膵組織像にも異常なく、十二指腸乳頭部組織にもいわゆる papillitis はみられなかった。胆道閉鎖の不全型³⁶⁾とは発症年齢、症状その他から考えられず、

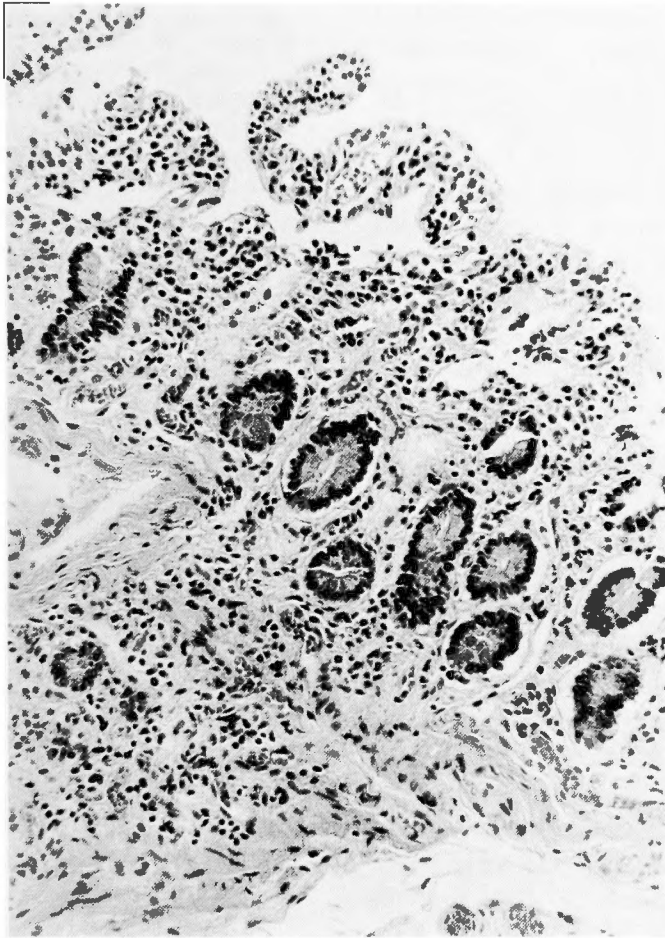


Fig. 4. Photomicroscopic specimen of the choledochal mucosa showing mild inflammation (H-E stain).

相良ら²⁶⁾、後藤ら⁹⁾の報告の黄疸非合併の慢性炎症による下部胆管良性狭窄（前者は乳頭状隆起性病変で、組織学的に fibrous hyperplasia で、後者も同様隆起粘膜の hyperplasia）とも肉眼所見、組織像とも異なると思われた。

Muscroft and Middleton²¹⁾の報告例は、発黄があり、組織学的には1cm長の下部胆管に限局的狭窄部は patchy mucosal ulceration, diffuse fibrous thickening と mild chronic inflammation を呈していたとし、彼らは spontaneous biliary stricture と表現してPSCとは異なる病態と考えており、自験例に類似と思われた。自験例においてもPSCの限局型との鑑別が問題となったが、組織学的所見、USにおける胆嚢内結石疑診、PSCの併存の systemic diseases^{29), 38)}を伴わなかったことなどから、一応は限局性慢性胆管

炎、それに起因の良性狭窄と結論した。成因としては胆石通過による炎症発生も考えられるが、臨床症状などからは断定し得ず、また胆石通過がこのような局所病変を惹起するか疑問がある。PSCの長期無症状例⁹⁾とも異なると思われる。

当初悪性狭窄と自験例に疑ったのは、造影での胆管壁不整で、中沢ら²²⁾の指摘で、胆管壁の線維性肥厚、胆管周囲の結合組織増生で胆管伸展性抑制されれば、上皮の乳頭状増生（自験例には証明されず）や胆管壁の肥厚による胆管内腔面の不整がX線像に反映され、辺縁像が不整となるためと思われた。胆管の狭窄性病変は部位と病変の広がりによって、USによる診断の可能性はさまざまであり、良性狭窄では病変の範囲が極めて限局性であり、特に下部胆管狭窄でのUS診断は困難と考えられている²³⁾。良性胆道狭窄部自体の

診断という面での CT の適応はないとされ²³⁾, RT と胆道造影の併用も行われるが¹⁰⁾, 下部胆管の小範囲の狭窄部自体の診断は困難と思われる。血管造影もこのような小範囲狭窄では病変描出は困難であろう。

一般に閉塞性黄疸を疑えば, US, PTC-(D), CT, ERCP, 動脈造影などを施行するが, 疾患病態により諸検査の精度に差異があり, 従って各検査結果を組み合わせる病態把握が行われる³⁵⁾。自験例のように閉塞性黄疸が比較的短い局在性狭窄に起因の場合, US, CT, 動脈造影は病変部を指摘し得ず, PTC, ERCP のみが狭窄部を指摘し, しかも悪性狭窄を示唆の所見であった。良・悪性の鑑別には, PTC-D, ERBD による胆汁細胞診の反復, PTC-D 部拡張による狭窄部粘膜の内視鏡的生検⁹⁾, 術中の胆道内視鏡下生検ないし直接生検などが考えられる。

PSC や悪性胆道狭窄に対する経皮的な狭窄部拡張も行われているが^{16, 24, 25)}, 自験例ではさして抵抗なくガイドワイヤーが狭窄部を通過し得た。前述の諸検査における悪性を示唆の所見の乖離に加えての, 容易な PTC-D 時ガイドワイヤーの狭窄部通過は良性を思わせる所見のひとつと考えたい。無論このような良性限局性の下部胆管狭窄が極めて稀である点からは, 実際には臍頭十二指腸切除に至るも止むを得ない。しかしこのような稀な病態の存在することをも認識し, 前述のような諸条件でもし良性狭窄が疑われれば, 良性疾患であるとの確認に努力して, より侵襲の少ない手術形態をとるべきであろう。

お わ り に

限局性の下部胆管狭窄により閉塞性黄疸発現の47歳男性に, 悪性狭窄を疑って臍頭十二指腸切除を施行したが, 組織学的検索では良性の chronic fibrous cholelithiasis で, 炎症の程度は moderate~mild であった。胆石脱落後の胆管炎症や PSC の限局型とは異なる病態と思われた。悪性狭窄との鑑別は非常に困難と思われるか, 術前諸検査の乖離, PTC-D 時ガイドワイヤーの容易な狭窄部通過は良性示唆所見といえるかも知れないと考える。

本学病理学教室諸兄の御教示に謝意を表します。なお本稿の一部は第22回日本消化器外科学会〔1983年7月・奈良〕で発表のものです。

References

- 1) Ackert J and Tobias H: Primary sclerosing cholangitis. *Am J Gastroenterol* **68**: 498-500,

- 1977.
- 2) Acosta JM and Nardi GL: Papillitis. *Arch Surg* **92**: 354-361, 1966.
- 3) 別府真琴, 堀川慎一, 他: Primary sclerosing cholangitis の一例. *日消病会誌* **73**: 1590-1598, 1976.
- 4) Caroli J and Rosner D: Chap. 129 Cholangitis. In *Gastroenterology* (vol. III) edited by Bockus HL, Philadelphia, WB Saunders, 1976, pp. 865-873.
- 5) Chapman RWG, Burroughs AK, et al: Long-standing asymptomatic primary sclerosing cholangitis: Report of three cases. *Dig Dis Sci* **26**: 778-782, 1981.
- 6) Cosman B and Porter MR: Benign stricture of the bile ducts. *Ann Surg* **152**: 730-742, 1960.
- 7) Delbet P: Retrecissement du cholédogue: Cholécyctoduodénostomie. *Bull Mem Soc Nation Chir* **50**: 1144-1146, 1924-cited by 13).
- 8) Fee HJ, Gewirtz H, et al: Sclerosing cholangitis and primary biliary cirrhosis—a disease spectrum? *Ann Surg* **186**: 589-593, 1977.
- 9) 後藤正己, 堀口裕爾, 他: 癌との鑑別が困難であった良性胆道狭窄の2例. *日内会誌* **71**: 1618, 1982.
- 10) Greenberg M, Greenberg BM, et al: Computed-tomographic cholangiography. *Radiol* **144**: 363-368, 1982.
- 11) Herman RE: Diagnosis and management of bile duct strictures. *Am J Surg* **130**: 519-522, 1975.
- 12) Krieger J and Porter RM: The roentgenologic appearance of sclerosing cholangitis. *Radiol* **95**: 369-375, 1970.
- 13) Lefkowitz JH: Primary sclerosing cholangitis. *Arch Intern Med* **142**: 1157-1160, 1982.
- 14) Lefton H and Winkelman E: Endoscopic retrograde cholangiographic evaluation of sclerosing cholangitis. *Cleve Clin Q* **41**: 143-147, 1974.
- 15) Macquart-Moulin G, Cornée J, et al: Jaundice and chronic pancreatitis. *Digestion* **20**: 410-415, 1980.
- 16) Martin EC, Fankuchen EI, et al: Percutaneous dilatation in primary sclerosing cholangitis: two experiences. *Am J Radiol* **137**: 603-605, 1981.
- 17) Meyers RN, Cooper JH, et al: Primary sclerosing cholangitis. Complete gross and histologic reversal after long-term steroid therapy. *Am J Gastroenterol* **53**: 527-538, 1970.
- 18) Mirizzi PL: Syndrome der conducto hepatico. *J Int Chir* **8**: 731-777, 1948-cited by 30).
- 19) Moorhead DT and Warren KW: Changing patterns of surgery of the gall bladder, bile ducts and liver. *Surg Clin North Am* **56**: 649-666, 1976.
- 20) 守田信義, 江里健輔, 他: 原発性硬化性胆管炎

- の3治験例。(附)本邦報告例の統計的観察. 日消外会誌 **12**: 275-282, 1979.
- 21) Muscroft TJ and Middleton MD: Spontaneous common bile duct stricture: an illustrated case report. *Br J Surg* **68**: 139-140, 1981.
- 22) 中沢三郎, 内藤端夫: 良性胆管狭窄症の成因と病理~慢性膵炎の膵部総胆管狭窄につて~. 胆と膵 **2**: 503-513, 1981.
- 23) 大藤正雄, 大野孝則, 他: 良性胆道狭窄の影像診断. 胆と膵 **2**: 495-402, 1981.
- 24) Pereiras RV Jr, Rheingold OJ, et al: Relief of malignant obstructive jaundice by percutaneous insertion of a permanent prosthesis in the biliary tree. *Ann Intern Med* **89**: 589-593, 1978.
- 25) Pollock TW, Ring ER, et al: Percutaneous decompression of benign and malignant biliary obstruction. *Arch Surg* **114**: 148-151, 1979.
- 26) 相良正彦, 上村志伸, 他: 悪性が疑われた下部胆管狭窄の1例. 胆と膵 **2**: 547-550, 1981.
- 27) Schwartz SI and Dale WA: Primary sclerosing cholangitis. Review and report of six cases. *Arch Surg* **77**: 439-451, 1958.
- 28) Shingelton WW and Gamburg D: Stenosis of the sphincter of Oddi. *Am J Surg* **119**: 35-37, 1970.
- 29) Sivak MV Jr, Farmer RG, et al: Sclerosing cholangitis: its increasing frequency of recognition and association with inflammatory bowel disease. *J Clin Gastroenterol* **3**: 261-266, 1981.
- 30) Starling JR and Matallana RH: Benign mechanical obstruction of the common hepatic duct (Mirrizi syndrome). *Surg* **88**: 737-740, 1980.
- 31) 杉田太一, 端野博康, 他: Primary sclerosing cholangitis の2症例. 外診 **15**: 737-742, 1973.
- 32) 杉浦光雄, 島 文夫, 他: 良性胆道狭窄. 外診 **18**: 382-389, 1976.
- 33) Sutton JP and Sachatello CR: The confluence stone. A hazardous complication of biliary tract disease. *Am J Surg* **116**: 659-663, 1968.
- 34) 立石卓生, 村上 明, 他: Primary sclerosing cholangitis の1手術治験例. 外診 **11**: 1500-1503, 1969.
- 35) Thomas MH, Pellegrini CA, et al: Usefulness of diagnostic tests for biliary obstruction. *Am J Surg* **144**: 102-108, 1982.
- 36) 戸谷拓二, 渡辺泰宏, 他: 小児の炎症性肝外胆管狭窄症一胆道閉鎖の不全型?一. 日小児外会誌 **18**: 1053-1059, 1982.
- 37) 氏家紘一, 竹腰隆男, 他: Primary sclerosing cholangitis とされる1症例. 日消病会誌 **69**: 1262, 1972.
- 38) Wenger J, Gingrich GW, et al: Sclerosing cholangitis: a manifestation of systemic disease. *Arch Intern Med* **116**: 509-514, 1965.
- 39) Wiesner RH and LaRusso, NF: Clinicopathologic features of the syndrome of primary sclerosing cholangitis. *Gastroenterol* **79**: 200-206, 1980.
- 40) Wisløff F, Jakobsen J, et al: Stenosis of the common bile duct in chronic pancreatitis. *Br J Surg* **69**: 52-54, 1982.