

# 黄疸の発現をみなかつた 特発性総胆管拡張症の1治験例\*

大阪医科大学外科学教室（指導 麻田 栄教授）

千葉 俊雄・磯橋 保・今中 勝治

〔原稿受付 昭和35年5月6日〕

## A CASE OF IDIOPATHIC COMMON BILE DUCT DILATATION WITHOUT JAUNDICE

by

TOSHIO CHIBA, TAMOTSU ISOHASHI and KATSUJI IMANAKA

From the Department of Surgery, Osaka Medical College, Takatsuki  
(Director: Prof. Dr. SAKAE ASADA)

The patient was a 1 year and 11 month female with the complaint of a large abdominal mass. No other subjective or objective symptoms were present.

Laparotomy was performed with an intratracheal inhalation anesthesia. It was found that the tumor mass was a dilated common bile duct. The dilatation was of an idiopathic type. An anastomosis was made between the cyst like tumor and the duodenum. Also, for the prevention of ascending infection, the gall bladder was removed.

One week after the operation, the patient began having fever and slight leucocytosis, suggesting the occurrence of an ascending infection. However, these symptoms disappeared with the administration of antibiotics. No jaundice was seen throughout the course.

Roentgenological examinations with barium meal, done four month after the operation, showed passage to be good, and no barium entered the cyst. At present, one year after the operation, the patient is doing well.

The liver biopsy, which was taken at the operation, showed changes compatible with hepatic cirrhosis, but stagnation of bile was not seen.

最近我々は、腹部の膨隆以外には何らの症状を認めなかつた幼女が、特発性総胆管拡張症であることを手術に依つて確認し、肝臓の試験切片に肝硬変像を証明した1例を経験したので、こゝに報告し、諸賢の御批判を仰ぎたい。

### 症 例

患者： 1年11ヵ月の女児。（昭和34年4月21日入

院）

主訴： 腹部膨隆

現病歴： 昭和32年5月9日満期安産、初生児黄疸が約7日間で消退して以来、健康であつた。昭和34年1月、腹部が普通の子供より大きいのではないかとの不審を抱いたが、特に変つた症状を来さなかつたので放置しておいたところ、約4ヵ月後に右季肋下の異常膨隆に気付き、某医により外科的治療を勧められ、当

\* 要旨は昭和34年6月25日京都外科集談会において発表した。

科に入院した。便通は1日1行、時に糞便が灰色を帯びることがあった。

既往歴及び家族歴：特記すべきことはない。

現症：体格中等、やゝ痩せており、顔貌は無気力状、眼瞼結膜は軽度に貧血性、舌は湿性で僅かに白苔を被り、咽頭正常、全身皮膚はやゝ乾燥しているが、発疹、黄疽、出血斑等は認められない。体温 36.8℃、脈搏66、緊張良好、血圧 108～64mmHg、呼吸は胸式で24、心音清、呼吸音は両側上肺野でやゝ粗、肺肝濁音界は右乳線上では第5肋間、脊部では肩胛骨下縁下約4横指にあり、呼吸性移動は不明である。腹部は図1

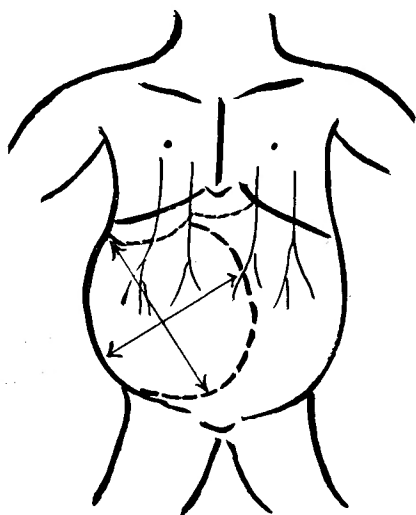


図1 腹部所見

の如く慢性性に膨隆し、特に右季肋下に於て著明、上腹部から胸部に向う数条の静脈怒張が認められ、浮腫はなく、蠕動不穏も見られない。打診上腹部全体は鼓音を呈し、聴診上腸雑音は右側に於て弱く、腹水は証明されない。触診では右季肋下に肝が2横指触知され、表面は平滑、硬度は弾力性で、この肝縁の下方から右下腹に及ぶ14×10cmの腫瘤があり、肝との間に辛うじて指が挿入出来る。この腫瘤の表面は平滑、境界は明瞭で、硬さは頭側は緊満性弾、尾側に行く程弾性であるが、呼吸性移動は不明である。双合診により波動が感知される。脾、腎は触れず、鼠蹊部、外陰部に異常を認めない。

### 諸検査成績

(1)血液；表1の如く著変を認めず、血清梅毒反応も陰性。(2)肝機能；表2の如くで黄疽はない。(3)尿；表

3の如く正常である。(4)尿；やゝ灰色を帯びた黄色の

表1 血液所見

|          | 血液一般検査              |                     |                     |                      |
|----------|---------------------|---------------------|---------------------|----------------------|
|          | (4月22日)<br>入院翌日     | 術前<br>9病日           | 術後<br>20病日          | (9月5日)<br>4ヵ月<br>2週間 |
| 赤血球数     | 521×10 <sup>4</sup> | 465×10 <sup>4</sup> | 503×10 <sup>4</sup> | 680×10 <sup>4</sup>  |
| Hb(ザーリー) | 95%                 | 78%                 | 75%                 | 89%                  |
| 白血球数     | 6,520               | 5,100               | 8,400               | 4,500                |
| 桿核       | 7%                  | 5%                  | 31.2%               | 18.4%                |
| Ⅱ        | 11%                 | 18%                 | 20.0%               | 24.8%                |
| Ⅲ        | 7%                  | 39%                 | 5.6%                | 10.4%                |
| Ⅳ        | 13%                 | 1%                  | 0.8%                | 3.2%                 |
| リンパ球大    | 11%                 | 3%                  | 9.6%                | 11.2%                |
| 小        | 48%                 | 28%                 | 24.8%               | 30.4%                |
| 好酸球      | 1%                  | 1%                  | 3.2%                | 0.8%                 |
| 好塩基球     | 0%                  | 0%                  | 0%                  | 0%                   |
| モノチーテン   | 1%                  | 5%                  | 4.8%                | 0.8%                 |
| プラズマ細胞   | 1%                  | 0%                  | 0%                  | 0%                   |

表2 肝機能

| 検査            | 血清肝機能検査              |                |                |
|---------------|----------------------|----------------|----------------|
|               | 術前<br>34年<br>4月22日採血 | 術後<br>13病日     | 34年<br>8月20日採血 |
| モイレングラハト値     | 3                    | 3              | 3              |
| セファリン・コレステロール | 2+                   | 0              | 3+             |
| 絮状反応          |                      |                |                |
| チモール混濁試験      | 2                    | 1              | 4              |
| コバルト反応        | R <sub>1</sub>       | R <sub>0</sub> | R <sub>0</sub> |
| Gros氏反応       |                      | 1.57           |                |
| 高田氏反応         |                      | 0              | 0              |

表3 尿処見

|          | 尿検査成績                 |              |              |              |
|----------|-----------------------|--------------|--------------|--------------|
|          | 術前<br>4月22日           | 術後<br>11病日   | 術後<br>30病日   | 術後<br>9月5日   |
| 外観       | 水様透明                  | 左同           | 左同           | 左同           |
| 色        | 淡黄色                   | 左同           | 左同           | 左同           |
| 比重       | 1010                  | 1069         |              |              |
| 性        | 弱アルカリ                 | 殆ど中性         | 弱酸           | 弱酸           |
| 蛋白       | {コッホ (-)<br>ズルフォ (-)} | {(-)<br>(-)} | {(-)<br>(-)} | {(-)<br>(-)} |
| 糖        | (-)                   | (-)          | (-)          | (-)          |
| (ニーランデル) | (-)                   | (-)          | (-)          | (-)          |
| ウロビリノーゲン | (+)                   | (+)          | (+)          | (+)          |
| ビリルビン    | (-)                   | (-)          | (-)          | (-)          |
| 赤血球      | 数箇                    | 認メズ          | 認メズ          | 認メズ          |
| 白血球      | 少量                    | 少量           | 少量           | 殆どナシ         |
| 上皮       | 扁平上皮                  | 左同           | 左同           | 左同           |
| 渣        | 円柱<br>ヒアリン (+)        | (+)          | (+)          | (+)          |

有形便で、粘液や血液を混ぜず、虫卵も証明されなかった。(5)X線所見；腹部単純撮影は図2の如く右側全汎に均等陰影が認められ、腸内ガス陰影は左下方に存在し、バリウム注腸検査で上行結腸、横行結腸と共に左下方に圧排されている像が認められたが、通過障害なく、腎盂撮影は正常、胆道撮影は実施されなかった。

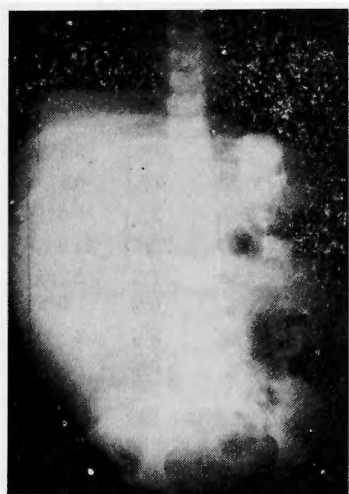


図2 腹部単純撮影

手術所見： 以上の所見から、一応 Dermoid Cyst の診断の下に、4月24日、気管内挿管、笑気麻酔で、右直腸筋外縁切開により開腹した。腹腔は淡黄透明の腹水少量が貯溜しており、小児頭大の右肝縁直下から右骨盤腔に達する青色楕円形の緊満した囊腫様腫瘍が認められ、穿刺により暗緑色透明胆汁約 1100cc が排除されたが(図3)、周囲臓器との関係を精査し、此の囊腫は総胆管なることが判明した。囊腫は後腹壁と軽度に癒着していたが囊腫の左外縁を走る十二指腸との間に癒着はなかった。胆嚢は囊腫より肝門側にあり、ほぼ正常大であった。囊腫の十二指腸への開口部を確かめんがため、両者に夫々割を入れて検索したが Vater 氏乳頭部を発見出来ないで、エバンス・ブルー溶液を囊腫内に注入して圧迫し、これが十二指腸へ流出するのを認め、即ち両者の間に交通があることを確認した。手術は囊腫切開部の壁の一部を切除し、これと十二指腸との間に側々吻合による内瘻を造設し、更に上行感染を予防する意味で胆嚢を剔除し、なお肝臓の試験切片を採取した後、一次的に腹腔を閉鎖した。

切除標本： i) 内眼的所見。囊腫壁は約4.5cmに肥厚し弾性硬であった。胆嚢は軽度に拡張し、壁に肥厚



図3 開腹処見  
中央が囊腫、上部に胆嚢を見る。囊腫の下縁に出た突起物は虫垂。

を認め、内腔は狭小で淡黄緑色、粘液様の液少量を容れていた。

ii) 組織学的所見。囊腫壁の粘膜は剝離脱落して殆んど認められず、粘膜下組織には結合組織が増殖し、出血及び細胞浸潤が認められ、外膜は結締組織性に著明に肥厚していた(図4)。胆嚢は上皮の一部が剝離し粘膜下組織に出血、充血及び軽度の細胞浸潤が認められ、この浸潤は筋層、外膜にも及び、外膜は粗鬆化し、即ち囊腫壁と同様の軽度の炎症像を示した。肝の



図4 総胆管壁組織像。  
(H.E. 染色 ×20)

試験切片には間質結合組織の増殖、大小種々の円形疑小葉の形成が見られ、間質結合組織内には疑胆管が多く、又リンパ球を主とした細胞浸潤が見られた。肝細胞内には変性壊死は見られず、又胆汁鬱滯像も殆んどなかった(図5)。即ち、この所見は輪状肝硬変像と称し得るものである。

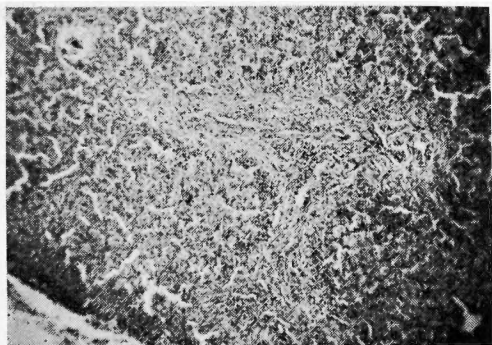


図5 肝臓試験切片組織像(H.E染色 ×50)

術後経過：縫合創は一期癒合を営んだ。術後37～39℃の弛張熱を来し、白血球数も軽度に増加し(表1)、十二指腸から胆道への上行感染が考えられたが、抗生剤の投与により約2ヵ月で消退した。尿は始め灰白黄色、泥状便であつたが、18病日以降より黄褐色、有形便、1日1行となり、肝機能では血清Co反応がRoに短縮したのみで(表2)、尿にも変化なく(表3)、X線検査では術後第16病日及び4ヵ月目ともにバリウムの通過状態は良好で、吻合部から総胆管への移行する如き所見は全く認められなかつた(図6)。術後1



図6 術後レ線写真(経口的バリウム摂取)

年余の現在迄に黄疸の発現は全然なく、患者は極めて元氣である。

## 考 按

1) 特発性総胆管拡張症は1852年 Dauglass<sup>8)</sup> <sup>11)</sup> <sup>20)</sup>の報告が第1例とされ、本邦では明治38年佐久間<sup>11)</sup> <sup>15)</sup>の報告が最初であり、以来、内外諸家の報告は250例以上に及んでいる。本症は子供、特に女兒に多く、Lichtman<sup>10)</sup>に依ると、その80%は女性、また50%は15歳未満であるという。本症例も1年11ヵ月の女兒であつた。

2) 本症の原因ないし本態については不明な点が多く、古来諸説<sup>10)</sup> <sup>11)</sup> <sup>15)</sup>がある。即ち、(i) 総胆管の発生異常、(ii) 胆管壁の先天性薄弱、(iii) 先天性の拡張素質、(iv) 胆道の走行異常、(v) 胆管十二指腸部の異常、(vi) 脾臓芽胞の牽引作用、(vii) 梅毒、(viii) 自律神経の失調等が挙げられているが、いずれも尚充分に納得のいく説はなく、長野<sup>11)</sup>等は Oddi 氏筋が痙攣性に収縮して、殊に Vater 氏乳頭部が弁状構造を来すために本症が成立にるとする説を有力としている。本症例では、胆管壁の薄弱ないし拡張素質という先天性因子のために胆汁の蓄積が起り、漸次大嚢腫を形成するに至つたものであるが、黄疸の発現が無く、尿も大低黄色を呈していたのは多少とも胆汁が十二指腸内へ流入していた故と思われ、時折この流入が不充分となつて胆汁が鬱滞し総胆管が次第に拡張し、そのために胆管十二指腸部附近に屈曲等の機械的変化が起ると、この際に灰白便を来し、此の事が更に胆汁鬱滞を助長したであろうことが想像される。何れにしても、本症の発生には先天性素質と後天性因子とが相共に関連していることが推定されるのである。

3) 本症に於ては腫瘤・黄疸・腹痛が Trias として挙げられており、其の他に悪心・嘔吐等を伴う場合も見られるのであるが、本症例では術前術後を通じて腫瘤のみ認め、他に何ら所見がなく、勿論潜在性黄疸も認められなかつた。かゝる症例は比較的珍らしく、これが幼児であることと相俟つて、術前診断を一層困難ならしめたのである。本症の診断にはX線検査が推賞されているが、然し一方、胆道造影に依つては殆んど陰影を示さないともいわれている<sup>11)</sup>。

4) 本症の治療法は手術以外にはないが、手術を行つても幼児の場合は合併症等を併発し、予後の不良な場合がかなり多い。術式は総胆管十二指腸吻合術が通常広く行われており<sup>11)</sup>、Roux-Y-Cholechochojejun-

stomy は上行感染防止の意味では望ましいが<sup>1)20)</sup>, 手術侵襲がやゝ大きいという難点がある. 其の他に外瘻造設術<sup>4)</sup>, 嚢腫胃吻合術<sup>12)16)</sup> 等がある. 我々は患者が幼児であるため, 手術侵襲を可及的小とせんがために Choledochoduodenostomy を行い成功を収めたのであるが, やはり一過性の上行感染を免れ得なかつたことは既述の通りである.

5) 本症例の肝臓試験切片には肝硬変の像が認められたので, 予後は不良であろうと想像される. 然し此の肝硬変像は胆汁性硬変の像に乏しく, むしろ Laennec 型を示したことは興味深い点で, 或いは本症とは別個にこの肝硬変が存在していたのではあるまいかとも考えられるが, それが先天性のものか否かは明らかではない.

### 結 語

腹部膨隆を主訴とした1年11ヵ月の女児が, 比較的稀な特発性総胆管拡張症であり, 且つ肝硬変症を合併していたにも拘わらず, 黄疸, その他の症状を全く示さなかつた1例を報告し, 少し考察を加えた次第である.

### 参 考 文 献

- 1) 土岐文英: 特発性総胆管拡張症の1例. 臨床外科, **13**, 577, 昭33.
- 2) 今井寅雄: 特発性総胆管拡張症. 東北医学雑誌, **17**, 99, 昭9.
- 3) 今野英子: 特発性総胆管拡張症の1例. 小児科診療, **21**, 170, 昭33.
- 4) 稲垣是成: 特発性総胆管拡張症の考察. 北海道医学雑誌, **443**, 1322, 大15.
- 5) 諫見勝則: 巨大な胆嚢々腫と思われる1症例. 長崎医学会雑誌, **33**, 230, 昭33.
- 6) 伊藤敬之: 胆石症再発と思われた総胆管嚢室の1例. 三重医学, **2**, 290, 昭33.
- 7) Julian A. Sterling: Surgical procedures concerning the Common Bile Duct. (Excluding Tumors). The Biliary Tract, 300, 1955.
- 8) 川島 敏: 特発性総胆管拡張症の1治験例. 日本消化機病学会雑誌, **54**, 241, 昭32.
- 9) 小林昌樹: 先天性胆道形成異常の5剖検例. 臨床小児医学, **6**, 72, 昭33.
- 10) Lichtman, S.S.: Choledochus Cyst; Congenital Dilatation of the Common Bile Ducts. Disease of the Liver, Gallbladder and Bile Ducts, **11**, 1245, 1953.
- 11) 長野政雄: 特発性総胆管拡張症. 臨床外科, **13**, 577, 昭33.
- 12) 中原 弘: 乳児特発性総胆管拡張症の1例. 日本外科宝函, **27**, 1582, 昭33.
- 13) 成田秀秋: 特発性総胆管拡張症の1例. 日本消化機病学会雑誌, **54**, 240, 昭32.
- 14) 白尾枝太郎: 先天性胆道閉鎖の1症例と乳児麻酔法の1考案. 日本外科学会雑誌, **58**, 1666, 昭33.
- 15) 佐藤政夫: 特発性総胆管拡張症について. 岡山医学会雑誌, **443**, 1322, 大15.
- 16) 鈴木 博: 肝外胆道畸型3例の報告. 日本外科宝函, **27**, 301, 昭33.
- 17) 高橋尚克: 特発性総胆管拡張症. 日本外科学会雑誌, **58**, 1980, 昭33.
- 18) Tyge C. Gertz: Spontaneous Perforation of the Common Bile Duct; Archives of Surgery, **78**, 7, 1959.
- 19) 梅野喬速: 特発性総胆管拡張症の1例について. 日本医科大学雑誌, **25**, 870, 昭33.
- 20) 渡辺三喜男: 特発性総胆管拡張症の本態並びに手術方針. 臨床外科, **2**, 28, 昭22.
- 21) 山川 年: 特発性総胆管拡張症に対する工夫について. 日本外科学会雑誌, **58**, 1864, 昭33.