

## 特異な経過をとつた特発性内胆汁瘻の1例

東京女子医科大学消化器病センター

竹村由美子・高田 忠敬・中村 光司・押瀧 英晃  
タケムラ ユ ミ コ タカダ タダヒロ ナカムラ コウジ オシブチ ヒデアキ  
 内田 泰彦・今泉 俊秀・朝戸 末男・亀岡 信吾  
ウチダ タイ彦 イマイズミ トシヒデ アサド スエオ カメオカ シンゴ  
 丸山 正隆・羽生富士夫  
マルヤマ マサタカ ハニエツブシ フジオ

(受付 昭和51年3月10日)

## I. 緒 言

内胆汁瘻とは、胆道と周囲組織との間に生じた異常交通路の総称であり、手術などの外的因子の関与なしに、自然発生的に形成されたものを特発性内胆汁瘻 Spontaneous internal biliary fistula といい、本邦においては比較的まれな疾患とされている。

最近われわれは、一旦自然治癒した内胆汁瘻が突然破綻し、胆汁性腹膜炎を併発した珍しい症例を経験したので報告する。

## II. 症 例

患者 杉○初○, 62歳, 男。

既往歴 特になし。

現病歴 昭和49年9月, 黄疸の発生をみたが自然消失した。

昭和50年9月, 腹部膨満感, 食思不振と共に食後の疝痛発作を繰り返し, 10月になり発熱を来たした。この間体重減少(10kg/1カ月)をみた。

10月12日, 当科受診し, 肝・胆道・脾疾患の疑いにて入院となった。

## (1) 第1回入院時所見

体格中等度。栄養不良。血圧 146/80mmHg。脈拍 102/min。体温37.2°C。皮膚乾燥あるも黄疸な

し。眼瞼結膜貧血様。

右季肋部に表面平滑, 軟かい鷲卵大の腫瘤を触知し, 同部の圧痛を認めた。

(入院時検査所見)

生化学的検査において, GOT, GPT, Al-p 上昇, A/G 比の低下がみられ, 血液検査において白血球の上昇と貧血が認められた。しかし, 入院後, 右季肋部の腫瘤は日毎に自然縮小し圧痛も消失した。同時に肝機能も正常。白血球数も正常となった(表1)。

(X線所見)

低緊張性十二指腸造影では, 十二指腸球部小弯

表1 第1回入院時検査所見

血液			
RBC	341×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	Hb	9.5 g/dl
WBC	13500/mm <sup>3</sup>	Ht	29.8%
生化学			
T-P	9.5 g/dl	Al-p	20.9 K A U
A/G	0.5	S-Amyl	197 S R U
I I	5	Glucose	71mg/dl
GOT	104 K U	U-N	10.5mg/dl
GPT	31 K U	Na	131mEq/L
LDH	216 K A U	K	4.7mEq/L
		Cl	96 mEq/L

Yumiko TAKEMURA, Tadahiro TAKADA, Koji NAKAMURA, Hideaki OSHIBUCHI, Yasuhiko UCHIDA, Toshihide IMAIZUMI, Sueo ASADO, Shingo KAMEOKA, Masataka MARUYAMA, Fujio HANYU, The Institute of Gastroenterology, Tokyo Women's Medical College: Unexpected rupture after closing of the spontaneous internal biliary fistula.

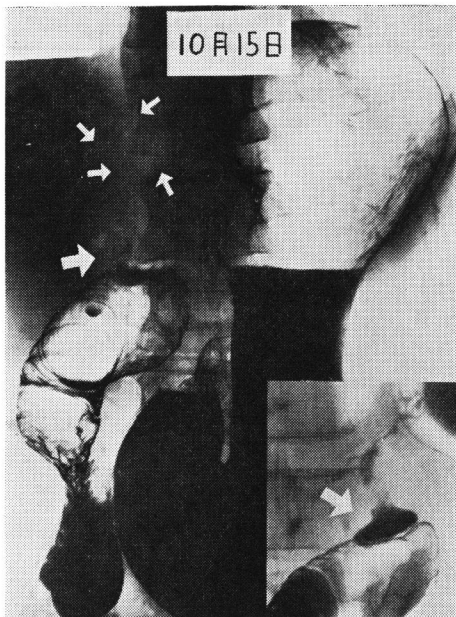


写真1 第1回低緊張性十二指腸造影。  
大矢印は内胆汁瘻の部位を示す。小矢印は Pneumobilia を示す。

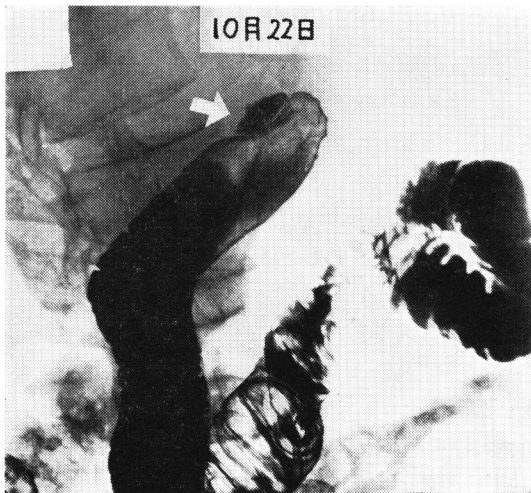


写真2 第2回低緊張性十二指腸造影。  
矢印は胆嚢への Barium の逆流像を示し、さらに上部への逆流はみられず、1週間前より内胆汁瘻は短縮縮小している。

側後壁より、バリウムの胆道内への逆流、即ち樹枝像 Biliary tree がみられた。同時に胆管内空気像 Pneumobilia も認められた(写真1)。

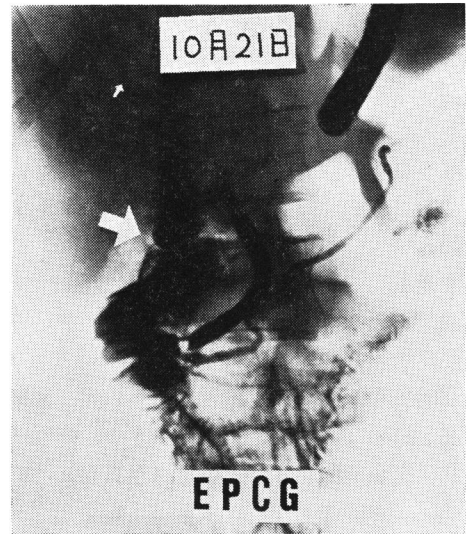


写真3 EPCG所見  
Pneumobilia (小矢印) 瘻孔ははつきりせず。

1週間後、再び低緊張性十二指腸造影を施行したが、既に内胆汁瘻は縮小し Pneumobilia は消失し、胆道全域のバリウム造影はみられなかった(写真2)。

(内視鏡的膵・胆管造影所見)

EPCGにおいては、乳頭部正常、膵管造影には異常は認められなかった。胆管造影では胆管の拡張並びに結石は認められなかったが、上部胆道に Pneumobilia をみた。なお胆嚢は十二指腸球部小弯側にのつかるようにしてみられた。内胆汁瘻の開口部を直接に確認できなかったが、十二指腸リングに接する位置の小弯側後壁から胆汁の混

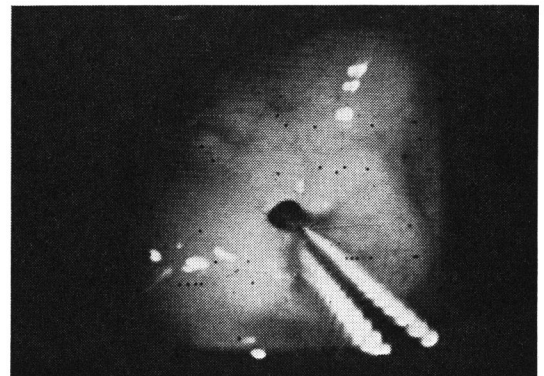


写真4 十二指腸鏡による内胆汁瘻開口部

じた乳白色の排液を部めた(写真3)。

(十二指腸鏡所見)

内胆汁瘻の開口部確認のため、再度十二指腸鏡を施行し、ここで内胆汁瘻の開口部を直接確認しえた(写真4)。

この開口部にファイバースコープを挿入するも、約3cmでつかえ、それ以上挿入不能で、結局瘻孔を通しての胆管内視鏡検査は成功しなかつた。

(経皮的胆管造影所見)

経皮的胆管造影では、胆管の拡張、並びに結石の存在も認めなかつた。胆嚢頸部と十二指腸球部の瘻孔は完全に閉鎖されていた(写真5)。

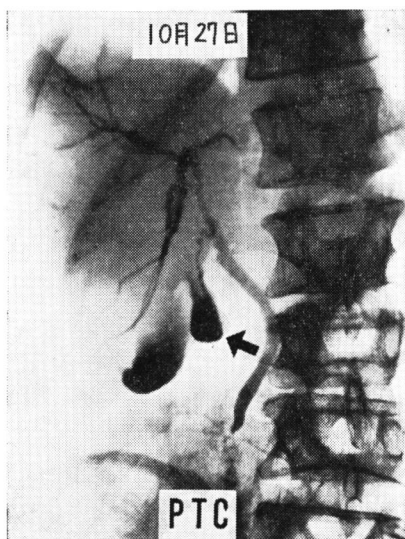


写真5 経皮的胆管造影。

矢印の部位が瘻孔部であつたところと思われる。

以上、瘻孔は急速に縮小し、閉鎖したため自然治癒として退院した。

しかし、退院後2日目、油物を食べたあと、突然の腹痛、悪心嘔吐、下痢がおこり、10月31日緊急再入院となつた。

## (2) 第2回入院時所見

歩行不能. 血圧80/mmHg, 脈拍144/min 微弱. 体温35.3°C. 意識やや混濁. 全身の発汗強く, 顔面蒼白でショック状態であつた。

腹部は膨満し, 鈍痛と筋性防禦を認めた。

表2 第2回入院時検査所見

血液			
RBC	311×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	Hb	11.3 g/dl
WBC	9500/mm <sup>3</sup>	Ht	34.4%
生化学			
T-P	8.3 g/dl	U-N	8.7mg/dl
A/G	0.6	Na	137mEq/L
I I	6	K	5.1mEq/L
GOT	20K U	Cl	101mEq/L
GPT	12K U	Glucose	80mg/dl
Al-P	12.9K A U	S-Amyl	2250 S R U
		U-Amyl	8372SRU/day

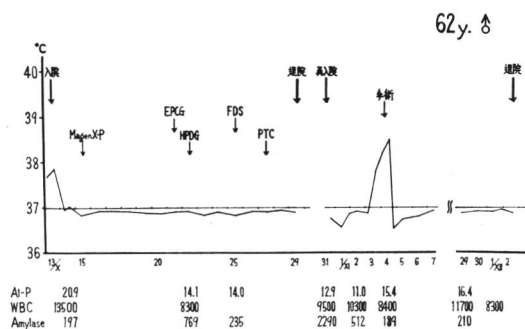


図1 入院後経過表

(再入院後の経過)

生化学的検査において、血清アミラーゼ2250SRUと上昇し(表2)、急性膵炎並びにそれによるショックと考え、強力な治療を開始した。

再入院後、漸次、血清アミラーゼは低下し、11月4日には189SRUと下降したが、腹部所見は徐々に悪化し、11月4日には38.0°C以上の熱発をきたした(図1)。

腹部単純撮影では、腹臥位にて腸内ガス充満像. 側臥位にて鏡面像を呈し、麻痺性イレウスの状態であつた(写真6)。

以上の所見、並びに臨床経過より、急性膵壊死の疑いにて、緊急開腹手術にふみきつた。

手術所見

開腹にて、膿性胆汁噴出し、右横隔膜下からダグラス窩まで、フィブリンの膜でおおわれた膿瘍が汎発性に認められた。

胆嚢、十二指腸、右腹壁が一塊の腫瘤を形成していた。

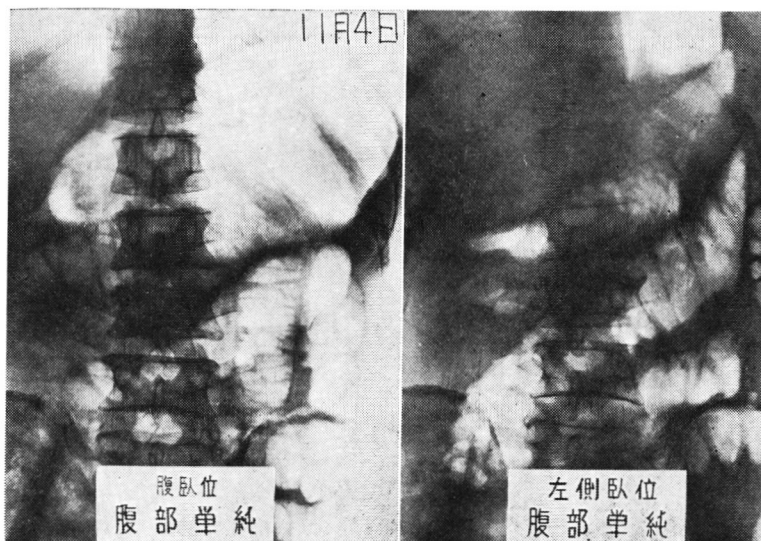


写真6 腹部単純X線撮影。  
腹臥位にてガス充満像。左側臥位にて鏡面像を呈する。

瘻孔の確認はできなかつたが、この部位に存在した胆嚢十二指腸瘻の破綻により、胆汁性腹膜炎が起こつたものと考えられた。

なお、臍は特別な異常所見は認められなかつた。

腹腔内を徹底的に排膿、洗浄し、ドレーンを挿入し、空腸瘻造設にて閉腹した。

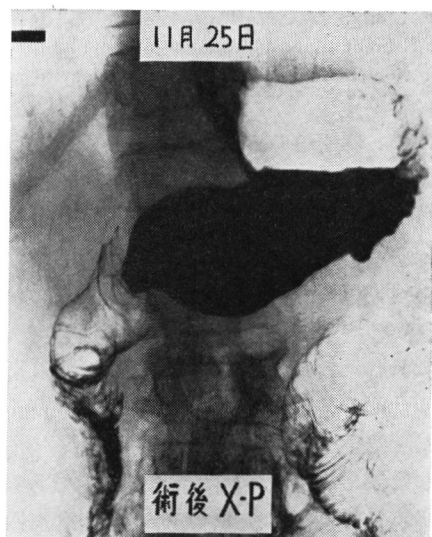


写真7 術後消化管透視。  
内胆汁瘻消失している。

術後経過良好にて、12月2日退院となつた。

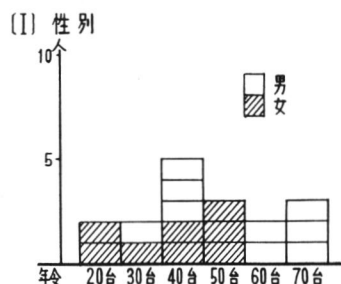
なお、術後胃X線検査では、胆道内へのバリウムの逆流並びに **Pneumobilia** も認めず、内胆汁瘻は消失していた(写真7)。

### III. 考 按

#### (I) 頻度

特発性内胆汁瘻は希な疾患とされているが、報告者によつてその頻度にもばらつきが多く、大体、胆道系手術の 0.5~0.7%、成人剖検例の 0.2~4%にみられるという<sup>1)</sup>。

われわれの教室では、過去8年間に17例を経験



#### (II) 発生部位

胆嚢十二指腸瘻 9例  
胆管十二指腸瘻 8例

〔図2〕内胆汁瘻症例の性別と発生部位  
東京女子医大消化器病センター1968. 1~1975. 12

している。これは同時期における胆石症 875例の約 2%を占めている<sup>11)</sup> (図 2)。

#### (2) 年齢, 性別

年齢並びに性別については、欧米では男:女 1:3, 年齢は50歳以上に多いといわれるが、本邦では男女比には差がない<sup>14)</sup>。

われわれの経験例でも、女性 8例、男性 9例と性別には差がなく、年齢的にも40台がピークで、比較的若年から高年者まで広くに亘っている。また若年者には女性が多く、高年者には男性が多い。特に60歳以上には5例経験したが5例とも男性であつた (図 2)<sup>14)</sup>。

#### (3) 発生部位

内胆汁瘻の発生部位としては、一般に腸管又は、胃との間に形成されるものが最も多く、中でも胆嚢十二指腸瘻が過半数を占めるという。Waggoner ら 819例の集計では、胆嚢十二指腸瘻が51%、胆嚢結腸瘻が21%、総胆管十二指腸瘻が19%である。木谷らの 812例では59.5%、21%、6.1%、胆嚢胃瘻 4.3%となつてゐる。他に、非常に希なものとして、小骨盤腔内婦人科臓器、腎臓などの後腹膜臓器、気管などの胸腔内臓器などの瘻孔形成もある<sup>15)</sup>。

われわれの経験例では、胆嚢十二指腸瘻 9例、胆管十二指腸瘻 8例であつた (図 2)<sup>14)</sup>。

#### (4) 成因

内胆汁瘻の成因としては、胆石症、消化性潰瘍の穿通、周囲臓器の悪性腫瘍があげられるが、胆石症によるものが90%近くを占めると言われている。この胆石症性内胆汁瘻の発生には、いわゆる Gallstone decubitus が大きな役割を果している。すなわち、胆石に伴う胆嚢炎の発作を繰り返し、結石が胆嚢頸部に侵入すると、胆石の圧迫により、胆嚢壁の血行が障害される。一方、胆嚢における水分の吸収も悪くなり胆嚢内圧が上昇する。胆嚢壁が壊死に陥り、この部位に近接臓器が癒着をおこし、これに結石の圧迫が加わり、潰瘍形成→組織壊死→瘻孔形成となるものと考えられる。瘻孔のできる位置は、胆嚢頸部内側十二指腸寄りが多く、これは胆嚢動脈が背側と腹側に分か

れて走つており、この部位が阻血状態に陥りやすいからである<sup>13-8)</sup>。

われわれの症例は、結石は確認できなかったが、既往の繰り返す腹痛、黄疸の出現、熱発などを考えると、この時期が Gallstone decubitus に至る過程で、その後、右季肋部腫瘍が急速に消失した段階で、胆嚢十二指腸瘻の形成と、それを通しての胆嚢内内容物の十二指腸への排泄がなされたものと考えられる。

#### (5) 診断

内胆汁瘻の診断は、以前は大部分手術後発見されるものが多く、術前診断は困難なものとされていた。しかし、最近の各種の X線診断学の進歩により、次第に診断率の向上がはかれるようになった。

報告した症例の如く、胆道内ガス像 Pneumobilia, 胃腸管 X線での造影剤の胆道内逆流による樹枝像 Biliary tree は本疾患の診断に有力な手がかりとなる (表 3)。

表 3 内胆汁瘻の X線診断 (Bormann)

1) Direct sign
a. Gas or barium, or both in the gall bladder or biliary tree.
b. Mucous membrane changes at the stom of fistula.
2) Indirect sign
a. Nonfunctioning gall badder (cholecystogram)

さらに、本疾患の診断には十二指腸鏡、また経皮的胆管造影法の進歩が大きな役割を果している。特に十二指腸鏡による直視下の瘻孔の確認、開口部よりの胆道造影は、内胆汁瘻の確定診断のみならず、以後の治療法の決定にも大きな役割を果している<sup>13-10)</sup>。

われわれの教室でも、17例中10例は十二指腸鏡で内胆汁瘻が発見されたものである<sup>14)</sup> (表 4)。

#### (6) 治療

内胆汁瘻の治療は外科的手術が原則である。特に、逆行性感染に伴う急性胆管炎、胆管炎性肝膿瘍の併発、腹痛発作を繰り返す例。また合併症として胆石イレウスを併発した場合は、可及的早期

表4 内胆瘻の診断  
東京女子医大消化器病センター  
1968.1~1975.12

腹部単純X線 (胆道内ガス像)	1
胃腸透視 (造影剤の胆道内逆流)	2
十二指腸内視鏡	10
経皮的胆管造影	2
手術時発見	2
計	17

表5 内胆瘻の治療  
東京女子医大消化器病センター  
1968.1~1975.12

開腹手術	14例
うち 胆石イレウス	1
瘻孔破綻→腹膜炎	1
瘻孔縮小閉鎖 (経過観察例)	3

になんらかの外科的処置が必要である。

しかし、無症状の限り経過観察も可能である。実際われわれは、17例中14例は外科手術を行ない、3例は瘻孔の縮小があつたので経過観察をしたものである<sup>11)</sup> (表5)。

なお、内胆汁瘻における経過観察の場合は常に逆行性感染に対する注意が必要である。

今回報告したような内胆汁瘻が一旦閉鎖した後の破綻例はいまだ報告をみず、極めて希な合併症といえるが、成因を考えた場合、当然起こりうる

ものと考えられる。したがって経過観察を行う場合に、従来述べられているような胆道感染に対する注意と同じに、内胆汁瘻破綻という合併症も考慮に入れ、慎重な観察が必要と考える。

#### IV. 結 語

以上、極めて希な内胆汁瘻の自然治癒がなされ、経過観察中に内胆汁瘻の破綻をおこした1例を報告すると共に、教室での内胆汁瘻の診断と治療について、若干の文献的考察を加えて報告した。

本文の要旨は、東京女子医科大学々会第201回例会において報告した。

#### 文 献

- 1) 古沢悌二：外科診療 15 330~336 (1973)
- 2) 本山博信：臨床放射線 19 829~840 (1974)
- 3) 三木一正：Gastroenterological Endoscopy 15 403~410 (1973)
- 4) 滝 正彦：Gastroenterological Endoscopy 14 414~419 (1972)
- 5) 吉田健生：内科室函 17 175~178 (1970)
- 6) 勝 健一：内科 32 1163~1168 (1973)
- 7) 古沢悌二：臨床と経験 51 190~192 (1974)
- 8) 岩村健一郎：Medicina 8 98~100 (1971)
- 9) 高浜俊勝：Gastroenterological Endoscopy 16 189~193 (1974)
- 10) 佐藤 真：外科 34 1420~1423 (1972)
- 11) 高田忠敬：Medicina 2 82~83 (1976)
- 12) 篠原幹男：外科診療 13 1285 (1971)