

AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

胆道 (2007.05) 21巻2号:189～193.

胆嚢低形成症の1例

小泉一也, 丹野誠志, 小山内学, 柳川伸幸, 木村圭介, 羽
広敦也, 中野靖弘, 中村和正, 蓑口まどか, 西川智哉, 水上
裕輔, 高後 裕

<症例報告>

胆嚢低形成症の 1 例

小泉 一也¹⁾ 丹野 誠志¹⁾²⁾ 小山内 学¹⁾ 柳川 伸幸¹⁾
 木村 圭介¹⁾ 羽広 敦也¹⁾ 中野 靖弘¹⁾ 中村 和正¹⁾
 蕨口まどか¹⁾ 西川 智哉¹⁾ 水上 裕輔¹⁾ 高後 裕¹⁾

要旨：症例は 36 歳，男性。右季肋部痛を主訴に近医を受診し，US，CT にて胆嚢が同定されないため，腹痛の精査目的に当科紹介となった。入院後の US，CT で肝床部に小構造物の存在が疑われたため，EUS を施行したところ，胆嚢管と連続する小嚢状構造物を認め，内部に胆泥が疑われた。ERC では胆嚢管から連続する小さな嚢状構造物が造影され，管腔内超音波検査で胆嚢管からの連続性を確認できた。胆嚢低形成症を疑ったが，自覚症状が持続し，萎縮胆嚢も否定できないことから摘出術を施行した。手術所見で小指頭大の胆嚢を認め摘出した。病理組織学的検査では粘膜上皮と固有筋層を認め，炎症細胞浸潤は軽度であった。術前にあった症状は術後に消失した。胆嚢低形成症は稀な胆道奇形であり，その画像所見については不明な点が多い。本症例は術前に胆嚢低形成症の画像所見を得られた貴重な症例であり，文献的考察を加え報告する。

索引用語：胆嚢低形成症 胆嚢欠損症 胆道形成不全

はじめに

胆嚢形成不全は比較的稀な胆道奇形であり，胆石，胆嚢炎様の症状を契機に発見されることが多い。また，術前診断は困難なことが多く，開腹時に初めて診断されることが多い。

胆嚢形成不全には胆嚢欠損症，低形成があるが，報告例はほとんどが欠損症であり，低形成症の報告は稀である。このため，胆嚢低形成症の画像所見については不明な点が多い。今回我々は，術前に胆嚢低形成症を疑い，各種の画像所見を得られた 1 例を経験したので，文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：36 歳，男性
 主訴：右季肋部痛
 既往歴：特記すべきことなし

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：数年前より時々右季肋部の違和感を自覚していたが放置していた。平成 13 年 7 月中旬より，微熱及び右季肋部痛が出現したため，近医を受診した。胆嚢炎を疑われたが，US，CT で胆嚢が同定されないため，腹痛の精査加療目的で当科を紹介され，平成 13 年 8 月下旬に入院となった。

入院時現症：身長 173cm，体重 60.2kg，血圧 107/56mmHg，脈拍 整，体温 37.1℃。結膜に貧血，黄疸を認めなかった。胸部理学的所見に異常を認めず，腹部は平坦，軟，右季肋部に軽度の圧痛を認めた。

入院時血液生化学検査所見：軽度の貧血を認める以外は，肝胆道系酵素，腫瘍マーカーを含めて正常であった（表）。

腹部超音波検査：肝内胆管，肝外胆管に拡張や結石を認めず，正常な胆嚢が存在すると考えられる部位に 10mm 大の小さな嚢状構造物を認めた。内部に結石，腫瘍などは認められなかった（図 1）。

腹部 CT 検査：本来の肝床部に胆嚢と思われる小さな低吸収域の構造物を認めたが，壁肥厚は認められなかった。肝外胆管に拡張を認めず，腹腔内に他に異常所見を認めなかった（図 2）。

¹⁾ 旭川医科大学消化器・血液腫瘍制御内科

²⁾ 旭川医科大学総合診療部

受領日：平成 19 年 1 月 10 日

受理日：平成 19 年 3 月 28 日

表 入院時検査所見

WBC	3750/mm ³	TP	6.4 g/dl
RBC	383×10 ⁴ /mm ³	T-Bil	0.6 g/dl
Hb	11.9 g/dl	D-Bil	0.1 g/dl
Htc	35.1%	AST	23 IU/l
Plt	15.2×10 ⁴ /mm ³	ALT	23 IU/l
		LDH	118 IU/l
HBs-Ag	(-)	ALP	153 IU/l
HCV	(-)	γ-GTP	14 IU/l
CRP	(-)	AMY	66 mg/dl
		BUN	17 mg/dl
CEA	3.5 ng/ml	Cr	0.86 mg/dl
CA19-9	10 U/ml		

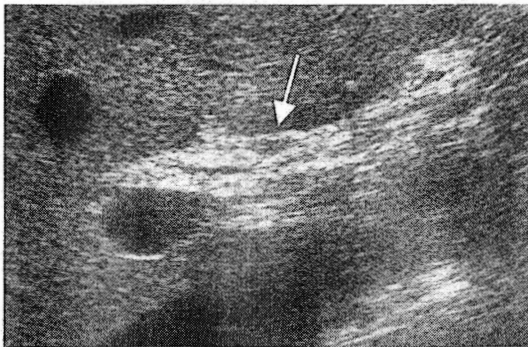


図1 腹部超音波検査所見:肝床部に10mm大の小さな嚢状構造物を認めた(矢印).

超音波内視鏡検査:総胆管から胆嚢管およびそれに連続する10mm大の胆嚢と考えられる嚢状構造物を認めた.嚢状構造物内に結石は認めないものの,内部は軽度の高エコーを呈し,胆泥の存在が疑われた(図3).

ERC, 管腔内超音波検査(IDUS):胆嚢管は中位分岐であり,胆嚢管から連続する小さな嚢状の構造物が造影された(図4a).膵胆管合流異常は認めなかった.IDUSでは胆嚢管からの連続性を確認できた.胆嚢管および胆嚢に壁肥厚は認められなかったが,内部にわずかに高エコーがみられ,胆泥が疑われた(図4b).

以上の画像所見より,胆嚢低形成症を疑った.内部に胆泥を認め,間歇的に右季肋部痛が持続すること,萎縮胆嚢も完全には否定できないことより,H13年10月中旬に胆嚢摘出術を施行した.

手術所見:Callot三角の脂肪織内に,肝下面に癒着することなく離れて小指頭大の胆嚢を認めた.胆嚢には

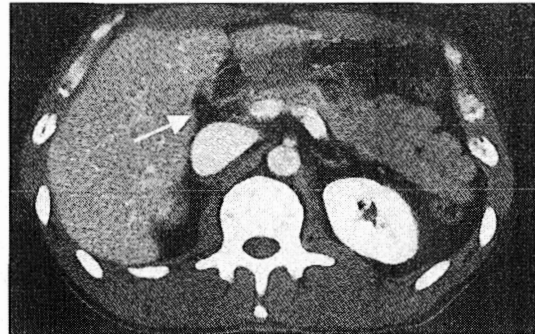


図2 腹部CT検査:肝床部に小さな低吸収域の構造物を認めた(矢印).

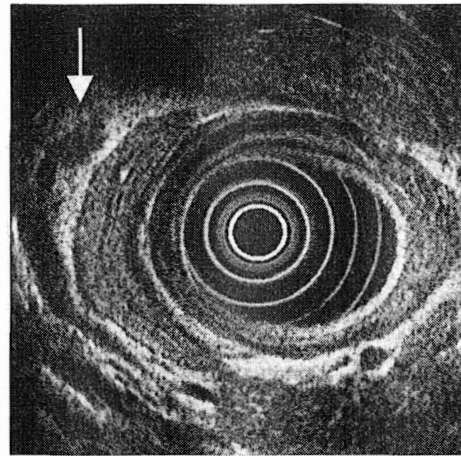


図3 超音波内視鏡検査:総胆管から胆嚢管を描出したところ,胆嚢管から連続する嚢状構造物を認めた(矢印).内部は胆泥の存在が疑われた.

明らかに確認できる流入動脈はなく,胆嚢周囲に炎症を疑わせる所見は認めなかった.腹腔内には他に異常を認めず,胆嚢摘出術を施行した.

摘出標本肉眼所見:胆嚢は8mm×6mm大で,内腔に腫瘍や胆泥,結石を認めなかった(図5).

病理組織学的所見:摘出標本は病理組織学的に粘膜上皮および固有筋層を有しており,胆嚢の壁構造として矛盾しなかった.異型上皮は見られず,炎症細胞浸潤は軽度であった.壁内にRokitansky-Aschoff sinusを認めた(図6).

術後経過は良好で,術後第9病日退院した.50ヵ月後の現在,右季肋部痛などの自覚症状の出現を認めて

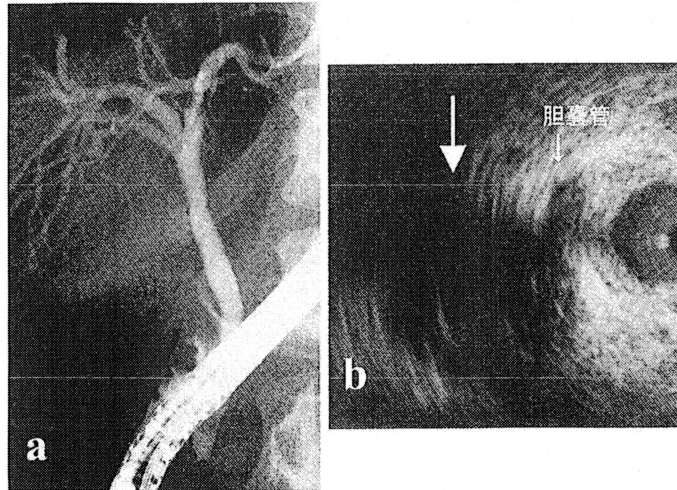


図4 a: ERCP 胆嚢管から連続する小嚢状構造が造影された。 b: IDUS 胆嚢管からの連続性を認めた (矢印)。

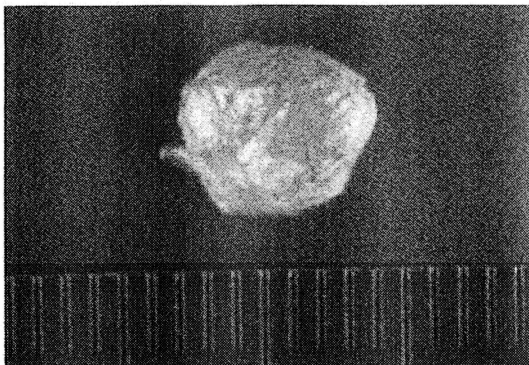


図5 摘出標本肉眼所見: 胆嚢は8mm×6mm大であった。

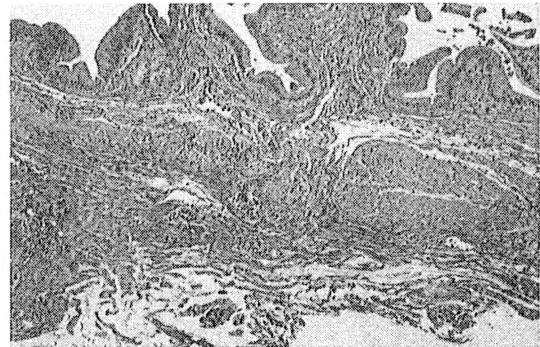


図6 病理組織学的所見: 粘膜上皮及び固有筋層を認める。炎症細胞浸潤は軽度であった。

いない。

考 察

先天性の胆道奇形である胆嚢欠損症と胆嚢低形成症は、本邦では1927年に初めて報告されたが¹⁾、著者らが検索し得た限りではこれまでに175例の報告例を認めるにすぎない。このうち、165例(94%)は胆嚢欠損症であり、胆嚢低形成症の報告は10例(6%)と少くない。

胆嚢形成不全の成因については2つの機序が報告されている²⁾。一つは、胎生4週頃に将来十二指腸となる

前腸から肝窩が形成され、肝窩の頭側から肝臓、肝管が、尾側より胆嚢と胆嚢管が形成されるが、この尾側肝窩の形成不全によるとする機序である。この場合は、胆嚢、胆嚢管ともに欠損する。もう一つの機序は、初期に管腔を形成していた胆嚢、胆嚢管、肝管、総胆管はsolid phaseと呼ばれる閉鎖期を経て、胎生7週頃に再疎通(recanalization)が生じ再び管腔を形成するが、その再疎通の障害によって生じるというものである。この場合は胆嚢、胆嚢管は存在するが不完全な索状物などの形態をとる。自験例では胆嚢管および連続する低形成の胆嚢の存在が認められていることから、後者の機序が関与したと推測される。

胆嚢形成不全の多くは胆嚢欠損症として報告され、低形成症の報告例は少ない。しかし、前述の后者の機序により索状物の残存のみとされている症例の中にも、嚢状の構造が確認されている報告も散見されることから、胆嚢欠損症の報告例の中には、実際には低形成とされるべき症例が含まれていると推測される。胆嚢低形成症は萎縮胆嚢との鑑別が問題となる。自験例では画像検査で壁肥厚や結石を認めず、病理組織学的に壁の炎症細胞浸潤は軽度であった。また、小さいながら内腔を有する胆嚢が認められ、それが組織学的にも胆嚢壁構造を有していることから、低形成症とすることが妥当と考えられる。

胆嚢低形成症は、胆嚢炎様の症状出現を契機に診断されることが多い。また、剖検時あるいは併存病変の発症時に偶然に発見される症例も多い³⁾。有症状例であっても、術前診断が困難で開腹にて初めて診断される例も少なくない。最近では腹腔鏡にて確認された症例も報告されている⁴⁾。自験例では、術前に種々の画像検査にて胆嚢低形成症の診断が可能であった。この要因としては、長径 8mm と小さいながらも胆嚢が存在したことに加え、EUS、IDUS といった機器の進歩があげられる。これらの機器により、総胆管から連続する構造物として小胆嚢を描出でき、内部構造を把握することが可能であった。

胆嚢欠損症に見られる疼痛の原因については、胆道内圧の上昇や、感染、結石形成等が考えられている^{6)~8)}。胆嚢欠損症では胆汁濃縮能が低下するため、胆管内の胆汁流量が増加し、胆道内圧の上昇、胆汁うっ滞が生じ、さらに感染の合併によって結石が形成されやすくなると推測されている⁷⁾。胆嚢低形成症における疼痛発症の機序は報告例が少なく明らかではないが、胆嚢欠損症と類似した病態の関与が考えられる。すなわち、胆嚢形成不全による胆汁の濃縮障害と、胆汁流量増加による胆嚢内圧上昇や胆汁うっ滞が関与すると思われる。特に、自験例においては術前画像検査で胆嚢内に胆泥を認め、胆嚢摘出後に右季肋部痛が消失したことから、胆嚢炎が疼痛発症にもっとも関与したと考えら

れる。自験例では手術時には胆泥を認めず、病理組織学的検査でも炎症細胞浸潤は軽度であったが、術前の画像検査から胆嚢摘出術までに 6 週間が経過しており、炎症が消退したためと考えられた。

胆嚢低形成症が疑われた場合の治療については、保存的治療が第一選択であるが、それにも関わらず症状が持続する場合には胆嚢摘出も検討する必要があると考えられる。

結 語

術前に胆嚢低形成症の画像所見を得られた稀な症例を経験したので報告した。

文 献

- 1) 石山福二郎. 総輸胆管閉塞石症を招来せる先天性胆嚢欠損症に就いて. 東京医事新報 1927; 2530: 1301
- 2) Gross RE. Congenital anomalies of the gallbladder. Arch Surg 1936; 32: 131-162
- 3) 杉本涼二, 木下壽文, 奥田康司, ほか. 胃癌の手術時に診断された先天性胆嚢欠損症の 1 例. 胆道 1997; 11: 450-454
- 4) 武井和夫, 武田一称, 篠原 靖, ほか. 硬化性胆管炎を合併した先天性胆嚢欠損症の 1 例. 胆道 1998; 12: 421-426
- 5) 石川慶大, 竹之内伸郎, 屋比久孝, ほか. 腹腔鏡にて確定診断が得られた先天性胆嚢欠損症の 1 例. 日外科系連会誌 2005; 30: 210-214
- 6) Ngheim DD, Read RC. Agnesis of the gallbladder and congenital lumbar hernia. South Med J 1979; 72: 1151-1153
- 7) Yamashita T, Panebianco A. Agnesis of the gallbladder. Am J Gastroenterol 1967; 45: 402-406
- 8) 佐藤邦夫, 岩崎美樹, 湯川道弘, ほか. 先天性胆嚢欠損症, 胆嚢低形成, 胆嚢閉鎖症. 肝外胆道 編: 別冊 日本臨牀 領域別症候群 9 肝・胆道系症候群. 日本臨牀社, 1996: 356-359
- 9) Waring HJ. Diseases of the liver, gallbladder and biliary system. New York: The Macmillan company, 1897: 63

A case of hypoplastic gallbladder

Kazuya Koizumi¹⁾, Satoshi Tanno¹⁾²⁾, Manabu Osanai¹⁾, Nobuyuki Yanagawa¹⁾,
Keisuke Kimura¹⁾, Atsuya Habiro¹⁾, Yasuhiro Nakano¹⁾, Kazumasa Nakamura¹⁾,
Madoka Minoguchi¹⁾, Tomoya Nishikawa¹⁾, Yusuke Mizukami¹⁾, Yutaka Kohgo¹⁾

Hypoplastic gallbladder is an extremely rare congenital anomaly. We report a case of hypoplastic gallbladder that was diagnosed preoperatively. A 36-year-old man was admitted to our affiliate hospital for right hypochondralgia. Although cholecystitis was suspected, US and CT failed to detect the gallbladder. He was referred to our hospital for further examination and treatment. US and CT showed a small structure on the liver bed. EUS clearly revealed a consecutive small cystic structure to the cystic duct. ERC demonstrated the structure continued with cystic duct. Since clinical symptom was not improved, open cholecystectomy was performed. Pathological examination revealed that the resected specimen has normal wall structure which is consistent with gallbladder. Preoperative symptoms disappeared after surgery.

JJBA 2007; 21: 189—193

¹⁾ Division of Gastroenterology and Hematology/Oncology, Department of Medicine, Asahikawa Medical College (Asahikawa)

²⁾ Department of General Medicine, Asahikawa Medical College (Asahikawa)

Key Words: hypoplastic gallbladder, agenesis of the gallbladder, cholecystitis