

症例報告

先天性胆道拡張症術後に十二指腸潰瘍出血による
出血性ショックで死亡した1剖検例多根総合病院 外科¹, 消化器内科², 病理診断部³

細田 洋平¹ 今中 孝¹ 佐藤 雅俊¹ 加藤 弘記¹
 川端 浩太¹ 松井 佑起¹ 小池 廣人¹ 神保 仁美²
 浅井 哲² 廣岡 紀文¹ 小川 稔¹ 森 琢児¹
 橋本 和明³ 小川 淳宏¹ 丹羽 英記¹

要 旨

症例は52歳, 女性. 前医で先天性胆道拡張症に対して, 肝外胆管切除術が施行された. 術後18日目に軽快退院となっていた. 術後はプロトンポンプ阻害薬を継続して内服していたが, 術後22日目の未明に繰り返す吐血が出現し, 当院に救急搬送となった. 来院時はショックバイタルで, 急速輸液にて血圧上昇認める responder であった. 緊急上部消化管内視鏡検査を施行したところ, 十二指腸に深掘れ潰瘍を認め, 同部より出血していたが, 内視鏡下には止血困難であった. その後, 再度血圧低下を認め, 内視鏡検査を中止し, 蘇生術を施行したが心肺停止から蘇生することなく不幸な転帰をとった. 急激な出血性ショックに至った経過について病理解剖を行った. 先天性胆道拡張症術後に十二指腸潰瘍出血による出血性ショックにより死亡した剖検例を経験したので報告する.

Key words: 先天性胆道拡張症; 術後合併症; 出血性ショック

はじめに

成人先天性胆道拡張症は胆道癌を高率に発症することが知られており, 本邦における先天性胆道拡張症に合併した胆道癌発生率は1990～2007年の全国集計報告では21.6%と高率である¹⁾. 先天性胆道拡張症の診断・治療ガイドライン²⁾には手術時期の明確なエビデンスはないが, 先天性胆道拡張症は胆道癌の発生母地であり³⁾, 若年での発癌症例もあるため, 診断確定後は早期手術の実施を提案すると記載されている. 術式としては胆嚢癌の合併頻度が高く, 胆嚢を含めた肝外胆管切除の実施が推奨されている^{4,5)}. また膵内胆管を可能な限り残さないように膵管合流部近くまで切除することが推奨されている⁶⁾が, 術後早期合併症には縫合不全, 剥離面からの出血, 急性膵炎, 膵液瘻, 消化管出血, イレウスがある²⁾. 今回われわれは

先天性胆道拡張症の術後に消化管出血により死亡した剖検例を経験したので報告する.

症 例

患者: 52歳, 女性.

主訴: 吐血.

現病歴: 前医で先天性胆道症に対して胆嚢を含めた肝外胆管切除, 胆管空腸吻合術(Roux-Y再建)を施行した. 術後Grade Aの膵液瘻は認めたが, 大きな合併症なく, 術後18日目に退院となっていた. 術後はプロトンポンプ阻害薬を継続して内服していた. 術後22日目の未明に繰り返す吐血が出現し, 当院に救急搬送となった.

併存症: 高血圧.

既往歴: 子宮嚢胞腫.

内服歴: アムロジピン5mg 1錠 分1 朝食後, 酸化



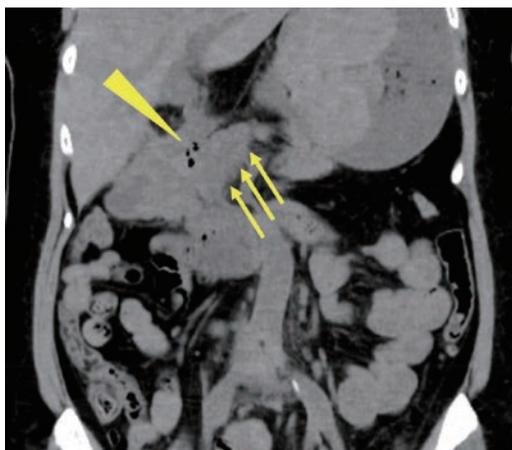


図1 腹部CT冠状断。胃内に高吸収の内容物を認めた。臍頭部は一部低吸収(矢印)で内部にガス(矢頭)を含んでいた。(電子版カラー掲載)

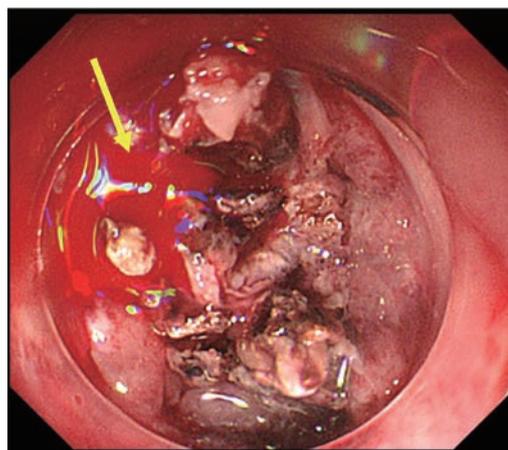


図2 十二指腸球部前壁から上十二指腸角前壁に凝血塊が付着しており、止血鉗子で凝固しながらこれを除去した。同部位に深掘れ潰瘍と活動性出血(矢印)を認めた。(電子版カラー掲載)

マグネシウム 330 mg 3錠 分3 毎食後, ポノプラザン 10 mg 1錠 分1 朝食後.

嗜好歴: 飲酒 耐ハイ 2杯/日, 喫煙なし.

アレルギー歴: なし.

現症: 意識レベル JCS 10-20, 冷汗あり, 眼瞼結膜 貧血あり, 眼球結膜 黄染なし, 体温 36.1°C, 血圧 119/69 mmHg (急速輸液後), 脈拍 66/分, SpO₂ 100% (酸素 6 l/分投与下), 呼吸数 18/分, 腹部は平坦・軟.

血液検査: WBC 10,500/ μ l, RBC 247万/ μ l, PLT 24.1万/ μ l, AST 7 U/l, ALT 10 U/l, LDH 92 U/l, T-Bil 0.2 mg/dl, TP 4.0 g/dl, Alb 2.2 g/dl, ChE 117 U/l, ALP 133 U/l, γ -GTP 34 U/l, UA 4.8 mg/dl, CPK 27 U/l, CRP 0.72 mg/dl, Na 138 mEq/l, K 3.6 mEq/l, Cl 109 mEq/l, Ca 7.4 mg/dl, 乳酸 3.5 mmol/l, PT 13.5 秒 (72%), PT (INR) 1.20, APTT 33.5 秒, HbA1c 6.3%.

胸部レントゲン: 異常なし.

胸腹部単純CT検査: 胃内に高吸収の内容物あり. 臍頭部は一部低吸収で内部にガスを含んでいた(図1).

来院後経過: 上部消化管出血によるショック状態の診断に対して, 直ちに急速輸液を行い, 吐血が持続していたため, 輸血療法を行った. 意識レベルが改善したところで緊急上部消化管内視鏡検査を施行した. 食道や胃内には多量の血液を認め, 可及的に吸引した. 十二指腸球部前壁から上十二指腸角前壁に凝血塊が付着しており, 止血鉗子で凝固しながらこれを除去した. 同部位に深掘れ潰瘍と活動性出血を認め, 高張Naエピネフリンを局注し, 止血鉗子で止血を試みたが出血の勢いが強く, 出血点がかなり深部であり止血に難渋した(図2). 明らかな活動性出血がなくなっ

たところで, 再度血圧低下, 徐脈(心拍数 20-30/分)を認め, 内視鏡を抜去した. その1分後に心肺停止, 無脈性電気活動の波形となり, 胸骨圧迫による心臓マッサージ, マスク換気の心肺蘇生を開始した. 心肺蘇生開始後10分後に心拍再開し, 経鼻胃管を胃内に留置した. 胃管から血性排液が持続し, 再度心肺停止状態となり, 心肺蘇生を行い, 2度の心拍再開はあったが, その後死亡が確認された.

後日, 前医に病状照会を行ったところ, 先天性胆道拡張症および胆管腫瘍に対して, 胆嚢を含む胆管切除+胆管空腸吻合術(Roux-Y再建)が施行され, 術後Grade Aの臍液瘻を認めたが, 術後経過は概ね良好で術後18日目に退院したとのことであった.

本症例に関して上部消化管出血による出血性ショックによる死亡と診断した. 急激な出血で内視鏡下に止血術を施行したにも関わらず, 止血困難で救命できなかったことから, 家族の同意のもと, 病理解剖を行った. 十二指腸球部に15×5mmの大きさ, 深さ17mmの潰瘍があり, 十二指腸壁を貫いて臍頭部に深掘れした潰瘍底を形成していた. この潰瘍底に血塊を認め, 潰瘍底の臍組織には出血を伴う壊死組織があり, 線維化を伴っていた(図3). 同部に腫瘍病変はなく, 強い炎症もみられなかった. 臍頭部や十二指腸周囲の動脈・静脈などの血管は手術後の繊維化組織に埋没しており, 走行は確認できなかった. 以上より臍組織の壊死の原因としては手術の循環障害が疑われた.

本症例のまとめとして, 先天性胆道拡張症手術後に臍・十二指腸の循環障害により生じた潰瘍からの多量の出血による失血死と診断した.

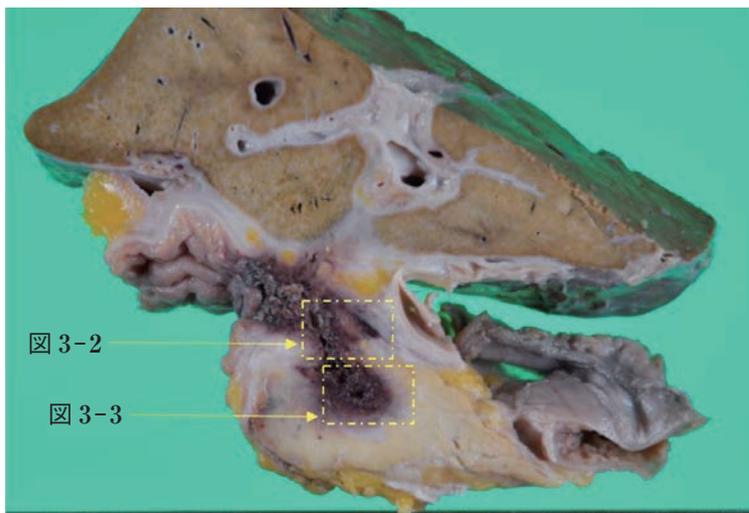


図3-1 十二指腸球部に大きさ15×5 mm, 深さ17 mmの潰瘍があり, 十二指腸壁を貫いて膵頭部に深掘れした潰瘍底を形成していた。(ホルマリン固定後) (電子版カラー掲載)

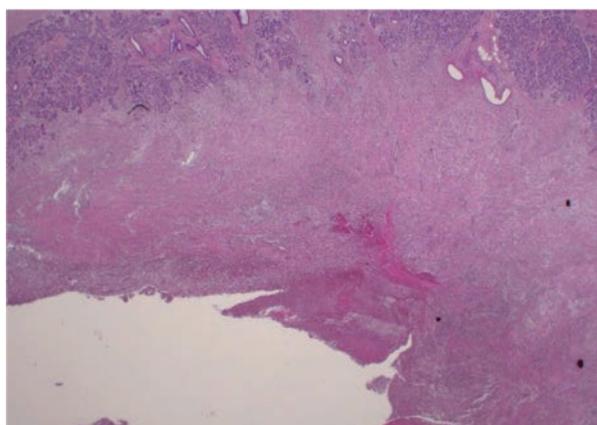


図3-2 潰瘍底の膵組織には出血を伴う壊死組織があり, 線維化を伴っていた。同部に腫瘍病変はなく, 強い炎症もみられなかった。(HE染色) (電子版カラー掲載)

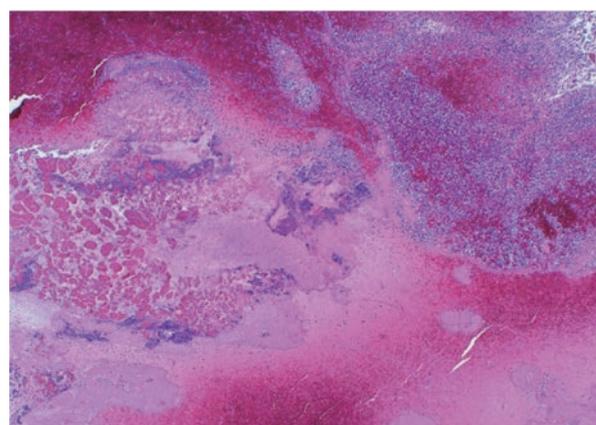


図3-3 膵組織は出血壊死を認めた。(HE染色) (電子版カラー掲載)

考 察

先天性胆道拡張症の発生機序は解明されていないが, 膵・胆管合流異常の発生と密接に関連している。全国集計結果¹⁾によると男性に比べ約3倍女性に優位に発症し, 特に20代までの若年女性に多い。膵・胆管合流異常においては乳頭部括約筋の作用が合流部に及ばないために膵液と胆汁の相互逆流を生じる。成人先天性胆道拡張症における胆道癌合併頻度は, 21.6%と高率で, 局在の割合は胆嚢癌62.3%, 胆管癌32.1%である。

先天性胆道拡張症は胆道癌の発生母地であることから診断がつけば手術適応とされ, 手術法としては胆道癌の合併頻度が高く, 胆嚢を含めた肝外胆管切除の実施が推奨されている^{4,5)}。また膵内胆管を可能な限り残さないように膵管合流部近くまで切除することが推

奨されている⁶⁾。また術後早期の合併症としては縫合不全, 剥離面からの出血, 急性膵炎, 膵液瘻, 消化管出血, イレウスがあるが頻度は高くはないとされる。

本症例において, 前医での手術において膵内胆管を遺残なく切除すべく, 胆管下部十二指腸側の狭小部(narrow segment)まで膵との間を剥離し, 膵管との合流部直前の胆管を結紮切離していた。剖検では十二指腸球部に深掘れ潰瘍を形成し, 潰瘍底の膵組織には出血を伴う壊死組織を認めた。手術操作に伴って膵・十二指腸の循環障害を引き起こし, 壊死に至ったものと考えられた。先天性胆道拡張症手術においては膵との剥離面からの出血や膵液瘻を引き起こしうるが, 本症例は剥離面近くの膵・十二指腸の循環障害により十二指腸に潰瘍を形成し, 膵組織が出血壊死を引き起こしたものと考えられた。膵組織の出血壊死に関しては内視鏡的止血は困難と考えられ, 出血原因が同定で

きていれば血管内治療や外科的処置を選択できた可能性がある。

結 語

先天性胆道拡張症術後に十二指腸潰瘍出血による出血性ショックで死亡した症例を経験した。術後合併症として頻度は高くないが剥離面の循環障害を起因とした十二指腸潰瘍、膵出血壊死をきたしうることを念頭におく必要がある。

文 献

- 1) 森根裕二, 島田光生, 久山寿子, 他: 全国集計からみた先天性胆道拡張症, 膵・胆管合流異常の胆道癌発生率とその特徴. 胆と膵, 31 (11): 1293-1299, 2010
- 2) 日本膵・胆管合流異常研究会: 先天性胆道拡張症 診断・治療ガイドライン. 2016, <https://www.jspbm.jp/pdf/CBD-GL.pdf>

- 3) Tashiro S, Imaizumi T, Ohkawa H, et al: Pancreaticobiliary maljunction: retrospective and nationwide survey in Japan. J Hepatobiliary Pancreat Surg, 10 (5): 345-351, 2003
- 4) Todani T, Watanabe Y, Narusue M, et al: Congenital bile duct cysts: Classification, operative procedures, and review of thirty-seven cases including cancer arising from choledochal cyst. Am J Surg, 134 (2): 263-269, 1977
- 5) Lilly JR: Total excision of choledochal cyst. Surg Gynecol Obstet, 146 (2): 254-256, 1978
- 6) Ando H, Kaneko K, Ito T, et al: Complete excision of the intrapancreatic portion of choledochal cysts. J Am Coll Surg, 183 (4): 317-321, 1996

Editorial Comment

手術はもちろんのこと、医療行為において合併症は一定の確率で発生するものである。本症例は先天性胆道拡張症術後、一定期間経過した後に内視鏡的に止血コントロール不能で救命困難な症例の報告である。本症例は剖検を行ったことにより単なる出血性十二指腸潰瘍ではなく、膵・十二指腸組織壊死に伴う膵実質からの出血であることが明らかとなった。内視鏡的に止

血治療困難な症例はそれほど多くはなく、臨床経過を含め治療内容に疑問を持つ症例には今後も積極的に剖検を行う意義があるということを考えさせられる1例である。

消化器内科
藤本直己