

症 例

## 炭酸カルシウム結石と石灰乳胆汁を合併した6歳女児胆嚢炎の1例

県立広島病院小児外科  
平原 慧 大津 一 弘

症例は6歳、女児。食後の腹痛を繰り返すため、前医を受診。造影CT・MRCPにて胆石症が疑われ、当科へ紹介となった。腹部X線検査にて胆嚢の石灰化像と前医CTにて胆嚢内に高輝度の鏡面像を認め、石灰乳胆汁を疑った。受診時、肝胆道系酵素の上昇や炎症所見はなく、鎮痛薬にて疼痛管理は良好であったため、全身麻酔下ERCPを施行した。膵胆管合流異常症はなく、胆嚢管から胆嚢頸部の欠損像と胆嚢管の総胆管への低位合流を認めた。胆嚢管の結石はガイドワイヤーによる移動は不可能であった。胆嚢管の結石嵌頓による石灰乳胆汁が原因の腹痛発作、胆嚢炎と診断した。腹腔鏡下胆嚢摘出術を行った。術中所見では、胆嚢頸部に高度の炎症を認め、慢性胆嚢炎の所見であった。周術期合併症なく術後4日目に退院となった。以降、腹痛発作は認めていない。石灰乳胆汁の小児報告例は稀であり、文献的考察を加えて報告する。

索引用語：石灰乳胆汁，腹腔鏡下胆嚢摘出術，小児胆石症

### 緒 言

石灰乳胆汁 (limy bile) は、胆嚢管の閉塞により形成される多量の炭酸カルシウムを含む胆汁で、腹部単純X線像で体位により移動する陽性陰影を示す特徴がある。頻度は成人胆石症例の1～3%に存在<sup>1)</sup>し、男女比は1:2.4と女性に多く、30-50歳台に最も多いとされている<sup>2)</sup>。中でも小児の報告例は少ない。今回われわれは、石灰化乳胆汁と術前診断し、腹腔鏡下胆嚢摘出を施行した小児例を経験したので報告する。

### 症 例

患者：6歳、女児。

主訴：腹痛。

現病歴：2021年8月、食後の間欠的な腹痛が出現したため、前医を受診。鎮痛薬にて経過観察となるも食後の間欠的腹痛が継続するため、造影CTを施行。胆嚢管、胆嚢内に高信号を認めた。MRCPにて膵胆管の評価はできなかった。前医にて小児胆石症が疑われ、精査加療目的に当科へ紹介となった。

既往歴：特記事項なし。

来院時現症：身長116cm，体重19.5kg，BMI 14.5kg/

m<sup>2</sup>，体温36.5℃，血圧93/64mmHg，脈拍101回/分，動脈酸素飽和度100%，腹部は平坦・軟，右季肋部痛や圧痛はなし，眼球結膜黄染なし。

血液検査所見：WBC 5,600/mm<sup>3</sup>，CRP 0.01mg/dLと炎症反応の上昇はなく，T-Bil 0.6mg/dL，D-Bil 0.1mg/dL，AST 23U/L，ALT 8U/L， $\gamma$  GTP 8U/L

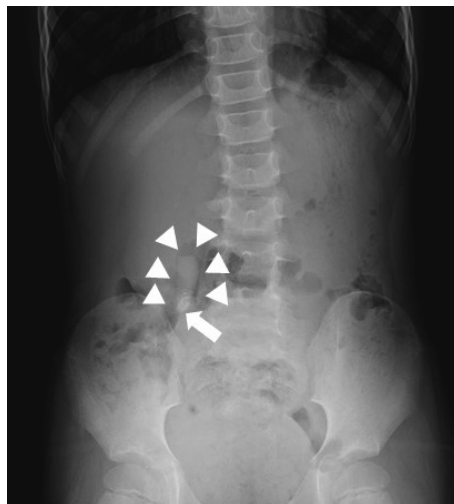


Fig. 1 腹部X線写真：胆嚢頸部の石灰化像（矢印）と胆嚢の石灰化像を認めた（矢頭）。

2023年1月13日受付 2023年3月17日採用

〈所属施設住所〉

〒734-8530 広島市南区宇品神田1-5-54

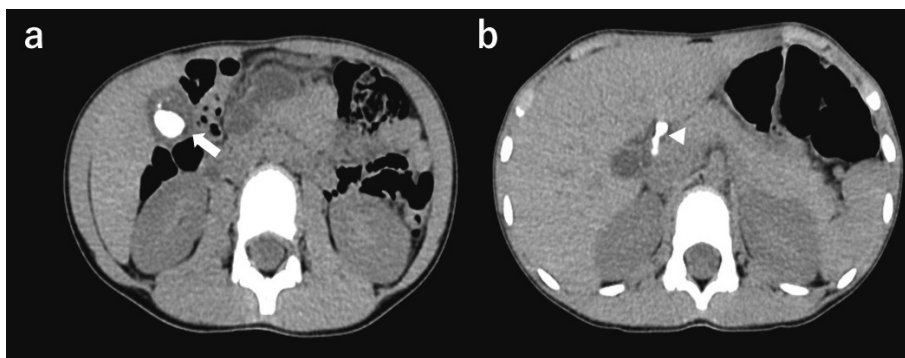


Fig. 2 前医造影CT所見：(a) 胆嚢の緊満は認めず、胆嚢内に鏡面像を伴う、高信号を認めた(矢印)。(b) 胆嚢管結石を認めた(矢頭)。

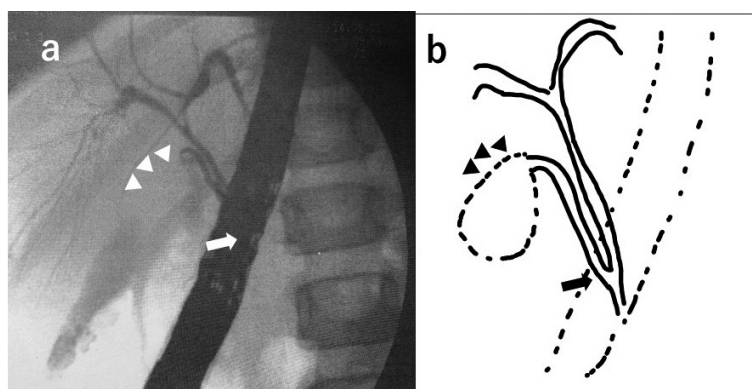


Fig. 3 全身麻酔下ERCP検査所見：(a) 胆嚢拡張や総胆管結石は認めなかった。胆嚢管移行陰影欠損(矢頭)を認め、ガイドワイヤーによる移動は不可能であった。胆嚢頸部結石の嵌頓と診断。膵胆管合流異常症は認めず、胆嚢管は総胆管に低位で合流し、総胆管と併走していた(矢印)。(b) は(a)のシェーマ。

と肝胆道系酵素の上昇は認めなかった。CEA 1.7ng/mLと腫瘍マーカーは正常値であった。

**腹部X線写真：**胆嚢頸部の石灰化像と胆嚢の石灰化像を認めた (Fig. 1)。

**前医造影CT所見：**胆嚢の緊満は認めず、胆嚢内に鏡面像を伴う、高信号を認めた (Fig. 2a)。胆嚢管に結石を認めた (Fig. 2b)。

**前医MRCP所見：**総胆管の描出は不良であり、膵胆管合流異常症の評価はできなかった。

**全身麻酔下ERCP所見：**胆嚢拡張や総胆管結石は認めなかった。胆嚢頸部に陰影欠損を認め、ガイドワイヤーによる移動は不可能であった。胆嚢頸部結石の嵌頓と診断。膵胆管合流異常症は認めず、胆嚢管は総胆管に低位で合流し、総胆管と併走していた (Fig. 3)。

**手術所見：**全身麻酔の下、開脚位にて手術を開始した。臍部より12mmカメラポートを挿入、心窩部に10mmポート、右側腹部に5mmポートを挿入した(4 port American style)。胆嚢は肥厚しており、胆嚢頸部の炎症は高度であった。慢性胆嚢炎と診断した。Critical view of safetyを確認し、型通りに胆嚢を摘出した。手術時間：3時間16分、出血：少量。

**切除胆嚢肉眼的所見：**胆嚢管には結石が嵌頓しており、胆嚢内に粘調度の高い石灰乳胆汁が充満していた (Fig. 4)。

**病理組織学的所見：**粘膜上皮には慢性炎症細胞浸潤と線維化がみられ、慢性胆嚢炎の所見であった。粘膜筋層内にCa成分の沈着は認めなかった (Fig. 5)。

**成分検査所見：**胆汁は炭酸カルシウムが98%以上で

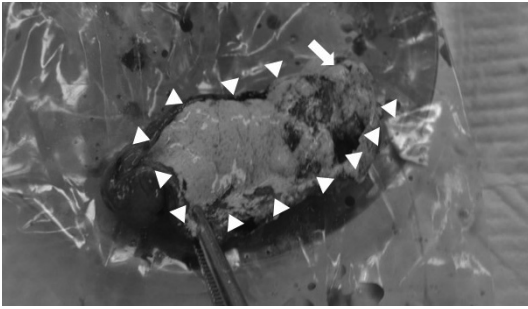


Fig. 4 切除胆嚢肉眼的所見：胆嚢管には結石が嵌頓しており（矢印）、胆嚢内に粘調度の高い白色胆汁が充満していた（矢頭）。

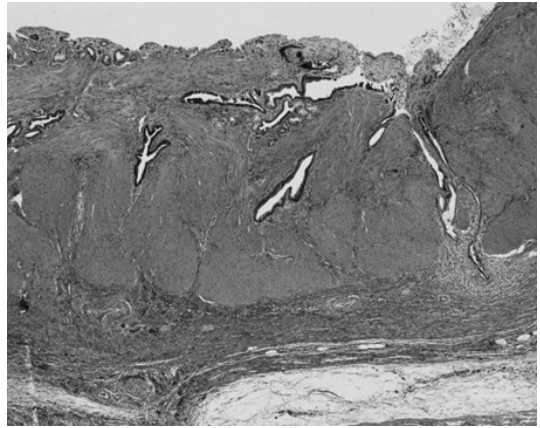


Fig. 5 病理組織学的検査所見：H.E.染色（×40）粘膜上皮下には慢性炎症細胞浸潤と線維化がみられ、慢性胆嚢炎の所見であった。粘膜筋層内にCa成分の沈着は認めなかった。

あった。胆嚢管結石は、炭酸カルシウム49%、ビリルビンカルシウム36%、リン酸カルシウム15%であった。

術後経過：手術翌日から食事再開。胆汁瘻等の重大な合併症はなく、術後4日目に退院した。術後1年半、腹痛なく経過している。

#### 考 察

石灰乳胆汁（limy bile）は、胆嚢管の閉塞により形成される多量の炭酸カルシウムを含む胆汁であり、1911年にChurchmann<sup>3)</sup>によって初めて報告され、本邦では玉木<sup>4)</sup>によって初めて報告された。石灰乳胆汁の頻度は手術症例の1～3%に存在し<sup>1)</sup>、男女比は1：2.4と女性に多く、30-50歳台に最も多いとされている<sup>2)</sup>。中でも小児例は稀であり、医学中央雑誌で1964～2022年11月までの期間で「石灰乳胆汁」「小児」をキーワードに用いて検索（会議録は除く）したところ、石灰乳胆汁の小児例は11例あり、本症例を合わせて12例のみ<sup>5)～15)</sup>であった（Table 1）。平均年齢は10.5歳であり、本症例は本邦最年少報告例であった。男児5例、女児7例であった。発見契機に関しては、全例で腹部単純X線における右上腹部の石灰化様陰影を契機に診断され、胆嚢結石の成分は12例中8例で炭酸カルシウムが主成分であった。基礎疾患に関しては、小児胆石症の約半数は膵胆管合流異常や血液疾患を伴うが、石灰乳胆汁を呈した12例中10例は基礎疾患を認めなかった。

本邦では石灰乳胆汁と炭酸カルシウム結石を区別して扱うのが一般的である<sup>16)</sup>が、石灰乳胆汁を放置すると炭酸カルシウム結石になるため、一連のスペクトラムであるという報告<sup>13)17)</sup>もある。Berg<sup>18)</sup>は石灰乳胆汁の硬度から乳状の液体、軟らかい糊状物質、粘液ゴム様物質、白墨様結石の4型に分類し、この差は結石形成

の時間的段階であると報告した。

石灰乳胆汁の成因としては、①胆嚢頸部もしくは胆嚢管の閉塞、②胆嚢壁の慢性炎症、③胆嚢胆汁のアルカリ化が主要因とされている<sup>2)17)</sup>。これは胆石などによる胆汁流出路の閉塞が慢性胆嚢炎を合併し、その結果胆嚢壁からのイオン化カルシウム分泌増加と胆嚢内での濃縮、酸化障害が起こると考えられている。①に関しては小児石灰乳胆汁の全例（本症例含む）に認めていた。胆嚢管閉塞は成人の場合、胆嚢結石嵌頓によるものが多いが、その他に癌、狭窄癥痕、胆嚢腺筋症、炎症の狭窄も報告<sup>2)</sup>されている。小児の場合、胆嚢管結石が成因となることが多い<sup>5)～15)</sup>ようである。ただし、本症例のように嵌頓結石が炭酸カルシウム結石であった場合、熊谷ら<sup>13)</sup>や浅野ら<sup>19)</sup>が述べているように、胆嚢管の一時的な閉塞が起こったのち、石灰化胆汁が生成され、その一部が炭酸カルシウム結石となり胆嚢管に流出嵌頓した可能性もあり、胆嚢結石と胆嚢内胆汁のどちらが先行したかは不明である。

②に関しては記載のある10例中9例（本症例含む）で認めていた。③に関しては、本邦では河内ら<sup>15)</sup>が石灰乳胆汁のpHが7.4であり、正常胆汁のpHと比較してアルカリ化していることを報告している。

術前診断に関しては、X線での石灰化胆嚢陰影や、CTでの鏡面像により石灰乳胆汁と診断できる。石灰乳胆汁の場合、前述したように小児においては閉塞が結石によることが多い。小児胆石症においては、膵胆管合流異常や胆道系の奇形等何らの基礎疾患をもつこ

Table 1 石灰乳胆汁の小児報告例

症例	報告者	報告年	性別	年齢	主訴	X線での胆嚢 石灰化陰影	結石陥頓の有無	総胆管結石	手術	胆嚢病理所見	結石主成分	基礎疾患	予後
1	中川	1980	女	7	右季肋部痛	あり	頸部陥頓	未記載	開腹胆嚢摘出+脾摘	未記載	ビリルビン結石	遺伝性球形赤血球症	術後1年腹痛なし
2	原田	1982	男	13	右季肋部痛	あり	胆嚢管閉塞	未記載	開腹胆嚢摘出術	慢性胆嚢炎	ビリルビン結石		詳細不明
3	星野	1983	男	10	右季肋部痛	あり	胆嚢管閉塞	なし (ERCP)	開腹胆嚢摘出術	慢性胆嚢炎	ビリルビン結石		詳細不明
4	町田	1984	女	7	右季肋部痛	あり	頸部陥頓	なし (DIC-CT)	未記載	慢性胆嚢炎	ビリルビン結石		詳細不明
5	中瀬	1987	男	7	右季肋部痛	あり	頸部陥頓	なし (CT)	開腹胆嚢摘出+脾摘	未記載	炭酸カルシウム結石	遺伝性球形赤血球症	術後2年腹痛なし
6	遠藤	2000	女	14	腹痛	あり	陥頓なし (機能的閉塞)	あり→自然排泄	腹腔鏡下胆嚢摘出術	炎症なし	炭酸カルシウム結石		詳細不明
7	高杉	2002	男	14	右季肋部痛	あり	胆嚢管陥頓	あり→ERCP →肺炎	胆嚢摘出術	慢性胆嚢炎	炭酸カルシウム結石		詳細不明
8	枝園	2003	男	14	腹痛	あり	胆嚢管陥頓	あり→ERCP →肺炎	開腹胆嚢摘出術	慢性胆嚢炎	炭酸カルシウム結石		詳細不明
9	熊谷	2004	女	12	右側腹部痛	あり	胆嚢管陥頓	なし (MRCP)	腹腔鏡下胆嚢摘出術	慢性胆嚢炎	炭酸カルシウム結石		4カ月間腹痛なし
10	阿部	2011	女	11	心窩部痛	あり	頸部陥頓	あり (MRCP)	開腹胆嚢摘出術 総胆管切開術	慢性胆嚢炎	炭酸カルシウム結石		術後2年腹痛なし
11	河内	2013	女	11	心窩部痛	あり	胆嚢管閉塞	なし (MRCP)	腹腔鏡下胆嚢摘出術 総胆管切開術	慢性胆嚢炎	炭酸カルシウム結石		術後8カ月腹痛なし
12	本症例	2023	女	6	腹痛	あり	胆嚢管閉塞	なし (胆嚢管低位合流)	腹腔鏡下胆嚢摘出術	慢性胆嚢炎	炭酸カルシウム結石		術後1年4カ月腹痛なし



とが多く<sup>20)</sup>、本症例は術前MRCPにて総胆管結石の有無や膵胆管合流異常症の否定ができなかったため、術前ERCPを施行した。本症例では、膵胆管合流異常は認めなかったが、胆嚢管低位合流が認められ、胆汁うっ滞を生じた<sup>21)22)</sup>ことで石灰乳胆汁または、胆嚢結石を生じた可能性がある。精査のためのERCPや術中胆道造影は重要であると考え、小児の場合では成人と比較しERCPの難易度が高く、重篤な偶発症リスクも高い<sup>23)</sup>。小児内視鏡ガイドラインでは体重10kg以上で成人と同じスコープを用いることができると記載<sup>24)</sup>があるが、すべての施設で小児ERCPが可能ではないと思われるため、適応は慎重に判断する必要がある。

石灰乳胆汁の治療法について、内科的治療を推奨するものから見つけ次第手術を行うといったものまで様々な報告<sup>12)12)</sup>がある。有症例例に対する手術治療に異論はないと思われるが、総胆管結石合併例に関しては、最近では成人例ではENBDまたはPTCDにより保存的に軽快する報告<sup>25)</sup>も認める。しかし、小児での総胆管結石を伴う石灰乳胆汁に対して、手術に先立ちERCPを施行した2例<sup>11)12)</sup>とも、ERCP後膵炎を発症し、治療に難渋しており、小児に対する内科的治療の困難さがうかがえる。また、胆嚢内の石灰乳胆汁は総胆管へ流出し、閉塞性黄疸をきたすと重症化するという報告が散見される<sup>19)26)</sup>。無症状の石灰乳胆汁を認めた場合に関しても、小児の内科的治療の難易度や有効性等を考慮すると、慎重な経過観察と治療介入時期を逸しないことが大切であると考え、

### 結 語

石灰化乳胆汁を術前検査にて診断し、腹腔鏡下胆嚢摘出術を施行した1例を報告した。石灰化乳胆汁の小児の報告例は少なく、若干の文献的考察を加えて報告した。

なお、本論文の要旨は第59回日本小児外科学会学術集会(2022年5月、東京;現地・Web開催)において発表した。

### 謝 辞

稿を終えるにあたり、病理組織診断でご高診いただいた当院病理診断科の先生方に深謝いたします。

利益相反：なし

### 文 献

1) 塚本忠司, 酒井克治, 木下博明他: 石灰乳胆汁21例の検討. 胆と膵 1988; 9: 537-542

2) 鈴木範美, 新妻義文, 新谷史明他: 石灰乳胆汁の考察. 胆と膵 1985; 6: 903-910

3) Churchmann JW: Acute cholecystitis with large amount of calcium soap in the gallbladder. Johns Hopkins Hosp Bull 1911; 22: 223

4) 玉木正男: 鬱滞胆嚢の1例. 実践医理学 1937; 7: 38-41

5) 中川隆雄, 四ヶ浦豊人, 白鳥敏夫他: 石灰乳胆汁と胆石を合併した小児遺伝性球状赤血球症の1例—および小児脾摘に関する1考察. 東女医大誌 1980; 50: 588-591

6) 原田貞美, 久次武晴, 上塚高弘他: 小児石灰乳胆汁の1治験例. 外科診療 1982; 24: 103-106

7) 星野澄人, 米田忠正, 栗本尚武他: 小児石灰乳胆汁の1例. 外科診療 1983; 25: 111-115

8) 町田浩道, 三橋 牧, 瀬下明良他: 石灰乳胆汁の2例. 東女医大誌 1984; 54: 1217-1222

9) 中瀬一郎, 岡村一則, 中野英明他: 石灰乳胆汁を合併した7歳10カ月男児における遺伝性球状赤血球症の1例. 外科診療 1987; 29: 958-962

10) 遠藤大一, 縣 裕篤, 廣田貴久他: 石灰乳胆汁の1小児例と最近10年間の動向. 小児臨 2000; 53: 947-951

11) 高杉尚志, 安藤由香, 島内泰宏: 石灰乳胆汁の14歳男児例. 小児臨 2002; 55: 1777-1780

12) 枝國忠彦, 水田 稔, 宇高徹総他: 急性膵炎をきたした小児石灰乳胆汁の1例. 臨外 2003; 58: 561-564

13) 熊谷秀規, 水野 大, 佐々木美香他: 石灰乳胆汁から炭酸カルシウム胆石を生じたと考えられる1小児例. 日小児栄消肝会誌 2004; 18: 86-90

14) 阿部二郎, 中嶋雅秀, 佐竹 明他: 総胆管結石症と石灰乳胆汁を合併した小児胆石症の1例. 小児内科 2011; 43: 1261-1265

15) 河内 要, 趙 有季, 山本美紀他: 石灰乳胆汁の成分分析を行った小児胆石症の1例. 日小児会誌 2013; 117: 1797-1803

16) 山形敏一, 横 哲夫, 大菅俊明他: 日本における胆石の新しい分類. 日消誌 1986; 83: 309-316

17) 斎藤和好, 菅野千治, 中館興一: 石灰乳胆汁. 胆と膵 1988; 9: 909-916

18) Berg J: Zur diagnose der“kalkgalle”. Fortsch Rontgenstr 1939; 60: 284-291

19) 浅野 博, 小島和人, 深野敬之他: 胆嚢から総胆

- 管に流出し閉塞性黄疸をきたした石灰乳胆汁の1例. *Gastroenterol Endosc* 2010; 52: 3140-3145
- 20) 岡田忠雄, 真家雅彦, 江東孝夫他: 小児胆石症の2例. *日小外会誌* 1995; 31: 20-26
- 21) Kubota Y, Yamaguchi T, Tani K, et al: Anatomical variation of pancreatobiliary ducts in biliary stone disease. *Abdom Imaging* 1993; 18: 145-149
- 22) Tsitouridis I, Lazaraki G, Papastergiou C, et al: Low conjunction of the cystic duct with the common bile duct: does it correlate with the formation of common bile duct stones? *Surg Endosc* 2007; 21: 48-52
- 23) 石井重登, 藤澤聡郎, 伊佐山浩通他: 小児胆管内視鏡治療に対する取り組み. *Gastroenterol Endosc* 2022; 64: 1147-1157
- 24) 日本小児栄養消化器肝臓学会/編: 小児消化器内視鏡ガイドライン2017. 診断と治療社, 東京, 2017, p70-74
- 25) 塚本忠志, 太田泰淳, 首藤太一他: 閉塞性黄疸をきたしたと考えられる石灰乳胆汁の1例. *胆道* 2002; 16: 63-67
- 26) 長澤真帆, 山田貴教, 尾上峻也他: 閉塞性黄疸を伴った総胆管内石灰乳胆汁の1例. *磐田総病誌* 2017; 11: 1-6

### A 6-YEAR-OLD GIRL WITH CHOLECYSTITIS, A CALCIUM CARBONATE GALLSTONE, AND LIMY BILE

Satoshi HIRAHARA and Kazuhiro OHTSU

Department of Pediatric Surgery, Hiroshima Prefectural Hospital

A 6-year-old girl was admitted with upper abdominal pain to her local hospital. She was referred to our hospital because abdominal computed tomography (CT) and magnetic resonance cholangiopancreatography (MRCP) showed cholelithiasis. Limy bile was suspected because the X-ray and CT showed a floating calcified shadow in the right upper abdominal region. On blood tests, hepatobiliary enzyme and CRP levels were within normal ranges. Her pain was easily relieved by an analgesic. ERCP under general anesthesia showed that there was no pancreaticobiliary maljunction, and there was low conjunction of the cystic duct with the common bile duct. There was a cystic duct stone that could not be moved with a guide wire. An attack of biliary colic caused by limy bile and cholecystitis was diagnosed, and laparoscopic cholecystectomy was performed. The neck of the gallbladder had severe inflammation, a finding of chronic cholecystitis. She was discharged on the 4th postoperative day. Limy bile is rare in a child. Thus, this case is reported along with a review of the literature.

**Key words** : limy bile, laparoscopic cholecystectomy, cholelithiasis in child