<症例報告>

肝悪性腫瘍との鑑別が困難であった sclerosed hemangioma の 1 症例

鵜飼 克明 小野寺博義* 三國 潤一 大内 清昭**

要 旨：症例は66歳の女性。C 型慢性活動性肝炎の経過観察中に血清 AFP 値の上昇を認め、腹部CTを行いS6に約1cmの低吸収域が疑われ入院となった。S6の病変は腹部超音波検査では内部エコーが高エコーで、造影CTでは造影早期及び後期いずれも濃染されなかった。経上腸間膜動脈的門脈造影下CTでは明瞭な門脈血流欠損域として認識された。腹部MRIではT2強調像で僅かに高信号で、T1強調像では僅かな低信号であった。超選択的右肝動脈造影では特記すべき所見は得られなかった。画像所見を総合し、肝動脈血流及び門脈血流に乏しい肝腫瘍、即ち胆管細胞癌、転移性肝癌、線維化の強い肝細胞癌などを疑い肝部分切除術を施行した。切除標本では、腫瘍は9×8mmで、断面は白色充実性、境界は明瞭で、病理組織学的に sclerosed hemangioma と診断された。各種画像検査を駆使しても sclerosed hemangioma の画像診断は困難と思われる。

索引用語： sclerosed hemangioma 画像診断

はじめに

肝血管腫は良性非上皮性肝腫瘍の中では最も頻度が多く^{1,2)}、多くは特徴的な画像所見³⁻⁶⁾により容易に診断される。しかし、希に肝血管腫は、腫瘍全体が線維化や硝子様化をきたし、sclerosed hemangioma や hyalinized hemangioma⁷⁻⁹⁾となる。これらは、一部の悪性肝腫瘍に類似した画像所見を呈し、各種診断法の進歩した現在においてもその画像診断は困難とされる⁹⁻¹²⁾。著者らは、C 型慢性活動性肝炎の経過中に発見され、乏血性の悪性肝腫瘍との鑑別が困難なため切除術がなされた sclerosed hemangioma の 1 症例を経験したのでその画像所見を中心に報告し、その診断方法についての考察も行う。

症 例

患者：66歳、女性。

主訴：血清 AFP 値の上昇。

既往歴：24歳の時に黄疸を伴う急性肝炎。

輸血歴：無し。

飲酒歴：無し。

現病歴：平成3年5月、膀胱炎症状にて近医を受診した際に肝機能障害及びHCV抗体陽性を指摘される。平成4年8月、精査・加療目的に当科紹介となる。平成4年9月に、肝生検にて慢性活動性肝炎(CAH2A)と診断しインターフェロン療法(HLBI総投与量240MU)を施行した。治療効果は難治性肝炎研究班の効果判定基準では「有効」であった。IFN投与終了後は当科にて1〜2ヵ月毎の血清AFP及びPIVKA-II測定及び3ヵ月毎の腹部超音波検査を行っていたが、特に異常は指摘できなかった。平成8年10月、AFP値の上昇(58ng/ml)を認め、同年11月に腹部CTを行い、S6に低吸収域(LDA)が疑われた。平成9年2月の再検でも病変の存在が疑われ、また血清AFP値もさらに上昇(88ng/ml)したので、平成9年3月に当科入院となった。

入院時現症：身長148cm、体重51.7kg、栄養状態良好。眼瞼結膜貧血無し、眼球結膜黄疸無し。手掌紅斑無し、クモ状血管腫無し。腹部は平坦かつ軟で、肝・脾は触知せず。腹水無し、下肢浮腫無し。

入院時検査成績(表1)：末梢血では、白血球減少及

A case of sclerosed hemangioma of the liver

Katsuaki UKAI, Hiroyoshi ONODERA*, Jyunichi MIKUNI, Kiyooki OUCHI**

*Department of Internal Medicine, Miyagi Cancer Center (Miyagi)

**Department of Surgery, Miyagi Cancer Center (Miyagi)

*宮城県立がんセンター内科, **同外科

<受付日1998年4月1日>

表1 入院時検査成績所見

Hematology		Blood Chemistry	
WBC	2800/mm ³	TP	7.8 g/dl
RBC	385×10 ⁴ /mm ³	alb	3.5 g/dl
Hb	13.6 g/dl	T-Bil	1.06 mg/dl
Ht	39.0%	AST	100 IU/l
Plt	8.0×10 ⁴ /mm ³	ALT	60 IU/l
		ALP	134 IU/l
		LDH	376 IU/l
Serological Tests		γ-GT	49 IU/l
HBsAg	(-)	CHE	639 IU/l
HCV-Ab	(+)	ZTT	19.7 KU
		FBS	89 mg/dl
AFP	81 ng/ml	ICG	24.2%
PIVKA-2	0.016 AU/ml		

び血小板減少を認め、血液生化学検査ではAST 優位のトランスアミナーゼの上昇、さらにICG 15分値の上昇を認め肝硬変を示唆する検査成績であった。血清AFP値は81 ng/mlと外来時に比べ変化はなかった。

腹部超音波所見 (図1) : 右肋間操作にて肝右葉後区域, ドーム直下に長径が1 cm 未満の高エコー病変を認めた。この腫瘍は2方向での描出が不可能なため、超音波検査上の存在診断は疑診になる¹³⁾。

腹部CT所見 : S6の肝表面直下に単純CTでは1 cm 未満のLDAを認めた (図2a)。同部は造影CT早期 (図2b) 及び後期 (図2c) において濃染されなかった。retrospectiveな検討では腫瘍周囲に僅かなリング状の濃染が疑われる。

経上腸間膜動脈的門脈造影下CT (CTAP) も行ったが、S6に明瞭な門脈血流欠損域 (perfusion defect) を認めた (図2d)。

腹部MRI所見 : 腹部CTの低吸収域に一致してS6肝被膜下にT2強調像で僅かに高信号で (図3a), T1強調像では僅かな低信号 (図3b) を呈する約1 cmの腫瘍性病変を認めた。Dynamic MRIも行ったが結節は濃染されなかった。

肝動脈造影所見 (図4) : 超選択的に右肝動脈造影を行ったが、綿花状のpooling, あるいは腫瘍濃染像は認めなかった。また、末梢の肝動脈にはencasementも認めなかった。

臨床経過 : 上記の画像所見を総合し、肝動脈血流及び門脈血流に乏しい肝腫瘍即ち胆管細胞癌、転移性肝癌、線維化の強い肝細胞癌などを考えた¹⁴⁾。確定診断のため組織診断が望まれたが、超音波映像下生検は、超音波での描出不良のために断念し、CT映像下生検も位置的に困難であり行わなかった。臨床的には上記の画

図1 腹部超音波所見 : S6に長径が約1 cmの高エコー病変を認める。2方向での描出が不能で、存在診断は疑診になる。

図2 腹部CT所見 : S6に単純CTでは1 cm 未満のLDAを認めた(2a)。同部は造影CT早期(2b)及び後期(2c)において濃染されない。経上腸間膜動脈的門脈造影下CTでは明瞭な門脈血流欠損域を認める(2d)。

図3 腹部MRI所見：(3a)T1強調画像では僅かな低信号，(3b)T2強調像で僅かに高信号を呈する約1cmの腫瘤性病変をS6に認める。

図5 切除標本肉眼所見：腫瘍のサイズは9×8mmで，割面は白色充実性，境界は明瞭，被膜の形成は認めない。なお，非腫瘍部の肝臓は乙'型肝硬変である。

図4 右肝動脈造影所見：S6には綿花状の pooling，あるいは腫瘍濃染像は認めない。

像診断に加え血清 AFP 値が上昇傾向を示すことを考慮し線維化の強い肝細胞癌を強く疑い，平成9年4月に当院外科にて肝 S6 部分切除術を施行した。

切除標本肉眼所見 (図5)：摘出した腫瘍のサイズは9×8mmで，割面は白色充実性，境界は明瞭，被膜の形成は認めなかった。なお，非腫瘍部の肝臓は乙'型肝硬変であった。

病理組織学的所見 (図6)：腫瘍の大部分は線維化や硝子様化の目立つ線維成分で構成されていた。一部には広い間質の中に血管腔を思わせる所見が得られた。なお，CD31 及び CD34 を用いた免疫染色で陽性像を示し，血管腔であることが確認され sclerosed heman-

図6 病理組織所見：(a)腫瘍の大部分は線維化や硝子様化の目立つ線維成分で構成されている。一部には広い間質の中に血管腔を思わせる所見が認められる (HE 染色，×40)。(b)血管腔様の構造は CD34 免疫染色で血管内皮と断定され，sclerosed hemangioma と診断 (×100)。(c)基質化した血管様の構造も確認される (Elastica Masson 染色，×200)。

gioma と診断した。強拡大では, ghost 化した血管及びその硝子様の変化が確認された。

考 察

肝海綿状血管腫（以下, 肝血管腫）は, 肝臓に認める非上皮性腫瘍の中では最も頻度が多く, 剖検例の 1~7% との報告もある^{1,2)}。近年の各種画像診断の進歩に伴って日常診療において肝血管腫との遭遇の機会は増加し, それとともに肝血管腫の確実な画像診断が要求されるようになった。

肝血管腫は組織学的には一層の内皮細胞に覆われた血管腔及び結合組織により構成される。画像所見はこれらの組織学的所見に加え血行所見も反映し, 多くの場合は特徴的な超音波所見, CT 所見, MRI 所見及び血管造影所見を示し, これらの画像所見単独あるいはその組合せにより容易に診断される³⁻⁶⁾。しかし, 希には診断に苦慮し悪性腫瘍が否定できず切除される肝血管腫の存在することが報告されている¹⁵⁾。

肝血管腫内にはときに新旧の血栓形成, 壊死巣, 癭痕組織, 石灰化などの様々な変性が見られることがある^{1,8)}。また血管腫内の血栓形成などにより, 局所的に退行性変化を示し, 線維化や硝子様化をきたすこともある。この変化が腫瘍全体に及んだ場合を sclerosed (あるいは hyalinized) hemangioma と呼んでいる^{8,9)}。その頻度は希で, Berry の報告¹⁶⁾では 1000 例の剖検症例に 2 例とされている。

sclerosed hemangioma に認める変性・退行性変化は画像所見を非典型的とし, 診断を困難とさせる要因の一つと考えられる。従って, 本腫瘍は転移性肝癌などの悪性肝腫瘍との鑑別は困難とされ⁹⁻¹²⁾, ときには自験例の如く転移性肝癌あるいは原発性肝癌の術前診断で肝切除術がなされてきた^{9,10)}。肝血管腫は一般的には肝切除術の適応とはならないが, sclerosed hemangioma は術前診断が困難であるが故に, 本来は不要な肝切除術が行われてきたと考えられる。

Sclerosed hemangioma の画像所見に関する報告は僅かに散見する程度であり⁹⁻¹²⁾, その画像診断は必ずしも確立されておらず, いかに正確な診断を下し, 不要な切除を避けるかが重要である。そこで, 自験例及び報告症例の画像所見を総合し sclerosed hemangioma の診断過程についての考察を行う。

報告された画像所見及び自験例を総合すると, 腹部超音波所見は, 腫瘍の内部エコーは均一な高エコーである。腹部 CT では, 単純 CT で LDA として認められ, 造影 CT の早期及び後期においては腫瘍内は濃染され

ず, 腫瘍周囲のリング状濃染を認めるが, 血管腫に特徴的な peripheral enhancement 及び fill-in の所見は認めない^{9,10)}。肝動脈造影では血管腫の診断に有用な pooling などの所見を認めず, CTAP では, 門脈血流欠損域として認められる。さらに腹部 MRI では, 肝血管腫に特徴的な T2 強調像の強い高信号は認められず, T2 強調画像で僅かに高信号で, T1 強調画像では僅かな低信号である。以上の所見は, 肝血管腫の画像所見とは全く異なり, 胆管細胞癌, 転移性肝癌, 線維化の強い肝細胞癌など門脈血流及び肝動脈血流に乏しい肝腫瘍に類似するものである¹⁴⁾。Sclerosed hemangioma は線維化や硝子様化が腫瘍全体にあるため, 血管腫に特徴的な画像所見は示さず, 上記の画像所見を呈するものと思われる。

なお, 自験例の画像診断を困難にさせた別の要因はその腫瘍径が約 1 cm と小型であった点である。一般的に肝腫瘍ではその腫瘍径が小さい場合は特徴的な画像所見を呈さず, 必ずしも画像上の診断基準が該当しない^{3,12,17)}。しかし, たとえ小型であっても自験例では乏血性腫瘍であることが画像所見により示されていた。

以上, 慢性活動性肝炎の経過観察中に発見され, 切除時, 乙'型肝硬変を背景病変として発見された sclerosed hemangioma の 1 症例を報告した。本腫瘍は乏血性の悪性肝腫瘍との鑑別は画像診断上は困難と思われる, 従って乏血性腫瘍の診断には超音波映像化生検などの組織検査が重要と考えた。

なおこの症例報告は 1998 年 2 月, 第 160 回日本消化器病学会東北支部例会において発表した。

文 献

- 1) Craig JR, Peters RL and Edmondson HA : Tumours of the liver and intrahepatic bile duct. Atlas of tumour pathology, second series, Fascicle 26. Edited by Hartmann WH, Armed Forces Institute of Pathology, Washington D.C., 1989
- 2) Zafrani ES : Update on vascular tumors of the liver. J Hepatol 8 : 125-130, 1989
- 3) Freeny PC, Vimont TR, Barnet DC : Cavernous hemangioma of the liver : ultrasonography, arteriography and computed tomography. Radiology 132 : 143-148, 1979
- 4) Itai Y, Ohtomo K, Araki T et al : Computed tomography of hepatic cavernous hemangioma

- of the liver. AJR 134 : 439—447, 1983
- 5) Onodera H, Ohta K, Oikawa M et al : Correlation of the real-time ultrasonographic appearance of hepatic hemangiomas with angiography. J Clin Ultrasound 11 : 421—425, 1983
- 6) Wittenberg J, Stark DD, Forman BH et al : Differentiation of hepatic metastases from hepatic hemangiomas and cysts by using MR imaging. AJR 151 : 79—84, 1988
- 7) Goodman ZD : Benign tumors of the liver. In : Neoplasms of the liver, Edited by Okuda K, Ishak KG. Springer-Verlag, Tokyo, 1987, p105—125
- 8) Ishak KG, Anthony PP, Sobin LH : Histopathological typing of tumours of the liver : World Health Organization International Histological Classification of tumours, 2nd ed, SpringerVerlag, Berlin, Heidelberg, 1994
- 9) Haratake J, Horie A and Nagafuchi Y : Hyalinized hemangioma of the liver. Am J Gastroenterol 87 : 234—236, 1992
- 10) Takayasu K, Moriyama N, Shima Y, et al : Atypical radiographic findings in hepatic cavernous hemangioma. AJR 146 : 1149—1153, 1986
- 11) Mathie D, Rahmouni A, Vasile N et al : Sclerosed liver hemangioma mimicking malignant tumor at MR imaging : Pathologic correlation. JMRI 4 : 506—508, 1994
- 12) Ito K, Honjo K, Fujita T et al : Liver neoplasms : Diagnostic pitfalls in cross-sectional imaging. Radiographics 16 : 273—293, 1996
- 13) 超音波診断基準. 「超音波診断第2版」日本超音波医学会編, 医学書院, 1994, 東京, p923—928
- 14) 中野雅行 : 血流の乏しい結節の組織診断. 「肝臓—診断と治療」沖田 極, 市田隆文編, 日本メディカルセンター, 東京, 1997, p235—241
- 15) 藤崎 滋, 三宅 洋, 中山寿之, 他 : 悪性の疑いで切除された非悪性肝腫瘍症例の検討. 日本外科学系連合学会誌 22 : 198—201, 1997
- 16) Berry CL : Solitary necrotic nodule of the liver : a probable pathogenesis. J Clin Pathol 38 : 1278—1280, 1985
- 17) 緒方一朗, 山下康行, 畑中義美, 他 : 肝血管腫のMRI所見 : 腫瘍型との関係. 日磁医誌 17 : 12—19, 1997
-