症 例

肝嚢胞腺腫の1例

聖マリアンナ医科大学横浜市西部病院外科, 同 病理*

小森山 広 幸 榎 本 武 治 田 中 一 郎

萩 原 優 品 川 俊 人*

症例は37歳, 女性。平成10年6月, 検診にて肝臓の嚢胞性疾患を指摘され受診した。血液生化学検査において肝機能障害, 腫瘍マーカーの上昇は認めなかった。腹部CT, 超音波検査では肝後区域に6 cm 大の多房性嚢胞性腫瘍を認めた。画像では嚢胞壁は薄く平滑であるが, 一部は不均一に厚く, 腫瘍性変化を疑った。確定診断を目的に超音波ガイド下に腫瘍を穿刺し内容液を吸引した。貯留液は漿液性でCEA は2,210ng/ml, CA19-9 は120,000U/ml を示した。肝嚢胞腺腫と診断したが, 肝嚢胞腺癌も否定し得ず腫瘍切除を行った。摘出標本で肝嚢胞腺腫の診断を得た。肝嚢胞腺腫は稀な疾患で現在までに34例が報告されているにすぎない。術前に肝嚢胞腺腫と肝嚢胞腺癌を鑑別するのは困難であるとされ, また肝嚢胞腺腫が癌化したと考えられる肝嚢胞腺癌の報告もある。肝嚢胞腺腫に対しては外科的切除が必要である。

索引用語: 肝嚢胞腺腫, 画像診断, 肝嚢胞腺癌

緒 言

肝嚢胞腺腫は稀な肝の嚢胞性腫瘍で, 女性に多く, 嚢胞腺癌への移行例も報告され, malignant potential を有すると考えられている¹⁾。今回われわれは, 肝嚢胞腺腫の1例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 37歳, 女性。

主訴: 右季肋部の不快感。

既往歴: 平成9年12月, 浸入奇胎にて子宮摘出術。

現病歴: 子宮摘出術後の定期検診で上腹部CTを行ったところ, 肝の嚢胞性腫瘍を疑われ, 平成10年6月当科紹介となった。

入院時現症: 身長148cm, 体重45kg, 栄養状態良好。腹部に腫瘍は触知しなかった。

入院時検査成績: 血液生化学検査にては, 血液一般, 尿, 腫瘍マーカーや血・尿中ヒト胎盤絨毛性ゴナドトロピンを含め, いずれも正常範囲であった。

腹部CT検査所見: 肝後区域に大小様々な嚢胞が集簇し, 一部隔壁の肥厚や造影効果を示す部分も認めた(図1)。

腹部超音波検査所見: 肝超音波検査でも嚢胞が集簇した所見を得た(図2)。嚢胞壁組織採取を目的に, 超音波ガイド下の穿刺細胞診を施行した。嚢胞液は漿液性でその腫瘍マーカーはCEA 2,210ng/ml, CA19-9 120,000U/ml であった。パパニコル染色ではclass I で組織は採取できなかった。

腹部MRI検査所見: 病変はMRIT1強調画像では低信号, T2強調画像では高信号で描出された。腫瘍内腔に突出する乳頭状変化は認められなかった(図3)。

図1 腹部CT像:
肝後区域に嚢胞の集簇を認める。

肝動脈造影検査では新生血管や腫瘍血管の増生などの異常所見はなかった。

以上より肝嚢胞腺腫と診断し、平成10年7月22日、腫瘍切除を行った。

手術所見：肝から腹腔側に突出する様に病変が存在し、腫瘍表面は白色の被膜で覆われていた(図4)。術中超音波検査を行い、腫瘍から十分に切除安全域を設定し、腫瘍摘出術を行った。

摘出標本：腫瘍の大きさは7.5×7.0×5.7cmで、断面は2mmから35mmまでの大小様々な嚢胞が混在し、一部粘液様物質が附着していた(図5)。肝と腫瘍

図2 肝超音波像：
肝に隔壁形成を伴う嚢胞性病変を認める。

図3 腹部MRI：
a：T1強調像で低信号，b：T2強調像で高信号を示した。

図4 開腹所見：
腫瘍は肝右葉後区域から腹腔側に突出するように存在していた。

の境界は明瞭であった。

病理組織学的所見：嚢胞壁は高円柱状，立方状の上皮で覆われ，一部に細胞成分に富む線維性間質，いわゆる ovarian-like stroma と呼称される組織像も認められた(図6)。CEA, CA19-9 染色では，嚢胞壁は共に良く染まり，これらの産生が伺われた。

考 察

肝嚢胞腺腫は，1958年に Edmondson²⁾によって初めて報告されたが，わが国では1983年の沖本ら³⁾の報告を嚆矢として，1999年までに自験例を加え医学中央雑誌より34例が集計できた(表1)。年齢は23歳から79歳まで分布し，平均50.2歳であった。男性9例(26%)，女性25例(74%)と女性に多く認めた。臨床症状とし

ては，腹痛を主訴としたものが13例，腫瘤触知が7例であり，腫瘤触知は初期の報告例に多い。最近の症例では腹痛での受診と共に，検診での無症状発見例が増加傾向にある。自験例は婦人科手術後の定期検診が診断への糸口となっている。病変部位は右葉が17例(51%)，左葉16例(47%)であるが，尾状葉発生例⁴⁾も報告されている。腫瘍径の記載のある29例について腫瘍の最大径は3cmから38cmに渡り，平均9.9cmであり，10cm以上は13例，10cm未満は16例であった。腫瘍の性状では，単房性8例(24%)，多房性26例(76%)で，内容物に関しては粘液性21例(71%)，漿液性7例(21%)，胆汁や出血塊，感染例また嚢胞内結石例⁴⁾も報告されている。

肝嚢胞腺腫の組織学的特徴は，粘液産生性の円柱ないし立方上皮細胞に加え，緻密な細胞間質を認めることから ovarian-like stroma と呼称される。Wheeler ら⁵⁾はこの特徴を有する群を cystadenoma with mesenchymal stroma (CMS) として報告している。本邦報告34例中 ovarian-like stroma がみられたとの報告は11例あり，全例女性である。男性例についての ovarian-like stroma 記載例はない。自験例は病理組織所見より Wheeler らの提唱する CMS に該当すると考えられた。

肝嚢胞腺腫の鑑別診断としては単純性肝嚢胞，肝嚢胞腺癌，包虫性嚢胞，カロリー病，肝内胆管嚢腫などが挙げられるが，肝嚢胞腺癌との鑑別が重要である。

図5 摘出標本肉眼像：

境界明瞭な7.5×7.0×5.7cmの多房性嚢胞で，嚢胞内腔には腫瘍性増殖を示す部分は認められない。

図6 病理組織所見

- a (HE 染色，×4)：嚢胞壁は高円柱状，立方状の上皮で覆われており，細胞異型は軽度で間質への浸潤などは認められない。
- b (HE 染色，×10)：一部細胞成分に富む線維性間質を伴っていた。

表1 肝囊胞腺腫本邦報告例

No	報告者・年	年齢・性	主 訴	部位	大きさ (cm)	内溶液	剖面	治療
1	沖本 1983	52 女	腹部腫瘍	尾状葉	17×16×8	漿液	多房性	囊胞切除
2	村上 1984	79 女	右上腹部腫瘍	左葉	10	漿液	単房性	開窓術八ヶ月後癌化
3	本田 1984	49 男	心窩部不快感	左葉	記載なし	粘液	多房性	左葉切除
4	小久保 1985	48 女	無症状	右葉	記載なし	粘液	多房性	腫瘍切除
5	小久保 1985	27 男	腹部腫瘍	右葉	記載なし	粘液	多房性	亜区域切除
6	富岡 1986	58 女	腹痛	左葉	18×15×14	粘液	多房性	左葉切除
7	富岡 1986	23 女	腹部腫瘍	右葉	13.5×9×6	粘液	多房性	右葉切除
8	土屋 1986	27 女	腹部腫瘍	左葉	38	粘液	多房性	囊胞切除
9	長谷川 1987	38 女	右季肋部痛	左葉	記載なし	粘液	多房性	拡大左葉切除
10	斉藤 1988	36 男	右背部痛	右葉	5×3	粘液	多房性	後区域切除
11	三浦 1988	37 女	悪心・嘔吐	左葉	3×4.5×3.5	粘液	多房性	部分切除
12	中田 1989	54 女	上腹部腫瘍・発熱	右葉	11×10×7	泥状	単房性	拡大右葉切除
13	北尾 1990	39 女	右上腹部圧迫感	右葉	9.5×11.5	粘液	多房性	囊胞摘出
14	川村 1990	41 女	右季肋部痛	右葉	15×13×8	漿液	多房性	腫瘍摘出
15	藤井 1990	40 男	腹部鈍痛	右葉	16×15×8	粘液	多房性	囊胞切除
16	寺島 1990	67 女	腹部腫瘍・心窩部痛	左葉	15×10	粘液	多房性	囊胞亜全摘
17	小野田 1991	71 女	全身倦怠感	右葉	4×3×3	漿液	単房性	囊胞穿刺
18	濱戸 1991	69 女	心窩部不快感	左葉	3.5	粘液	多房性	左葉切除
19	大曲 1991	51 女	検診	右葉	10	粘液	多房性	囊胞切除
20	山科 1992	78 女	心窩部痛	左葉	記載なし	粘液	多房性	囊胞生検・穿刺
21	杉山 1992	68 男	検診	右葉	4.8×4	粘液	多房性	エタノール注入
22	竹村 1994	55 男	右季肋部痛	右葉	4.9×4.5	胆汁	単房性	囊胞切除
23	辻 1994	59 男	検診	左葉	4×4×4	粘液	多房性	部分切除
24	小林 1994	51 男	検診	左葉	7×6.5×7	泥状	単房性	部分切除
25	高濱 1994	54 女	検診	左葉	3.3×2.5×2.3	凝血塊	単房性	区域切除
26	石田 1996	63 女	背部張り感	左葉	5.5×5.5×5	粘液	多房性	区域切除
27	北溝口 1996	39 女	心窩部痛	左葉	8×8×7	粘液	多房性	左葉切除
28	田中 1996	39 女	上腹部痛	左葉	6.5×7.5×4	粘液	多房性	囊胞切除
29	小林 1998	71 男	右季肋部痛	左葉	5×4.8×4.5	胆汁	単房性	部分切除
30	小西 1998	34 女	黄疸	右葉	12	漿液	単房性	区域切除
31	立川 1998	52 女	心窩部痛	右葉	6×5×3	粘液	多房性	核出術
32	八木 1999	68 女	心窩部痛	左葉	6×6×8	漿液	多房性	左葉切除
33	吉田 1999	64 女	腹部膨満感	右葉	14×13×13	混濁液	多房性	核出術
34	自験例	37 女	腹部不快感	右葉	7×7×5	漿液	多房性	部分切除

単純性肝囊胞はCT, 超音波で囊胞壁の肥厚や石灰化, 囊胞内充実性成分や多房性変化はみられない。囊胞の集簇や, 内部に充実性成分を伴う囊胞性病変の場合は, 肝囊胞腺腫あるいは肝囊胞腺腫を考える必要がある。両者の画像上の鑑別について, Korobkin ら⁹⁾はCT, 超音波でみられる多房性囊胞の壁や, 隔壁に沿った充実性の腫瘍や石灰化の存在は, 悪性の可能性が強いと述べている。血管造影における囊胞腺腫の所見としては, 新生血管の増生や血管壁の不整, 囊胞壁・隔壁の濃染, あるいは囊胞内の充実性成分に一致した結節状の濃染がみられることである⁷⁾。しかし, 肝囊胞腺腫でも囊胞壁の石灰化, 囊胞内の充実性成分存在例や血管造影での囊胞壁および中隔の濃染例⁴⁾⁸⁾が報告されており, 術前の良悪性診断は困難なことがある。自験例

では, CT 上隔壁の部分的肥厚や造影効果を示す部分も認めたが, 血管造影では新生血管の増生や血管壁の不整はなく, 肝囊胞腺腫と診断した。

囊胞内容液の腫瘍マーカー測定による良悪性診断についても検討されている。囊胞腺腫の場合, 囊胞内CEA は正常から17,900ng/ml, CA19-9 は1,540,000 U/ml まで報告されている⁹⁾。一方, 囊胞腺癌でも, CEA, CA19-9 は高値を示し, 囊胞内容液の腫瘍マーカーの測定値を良悪性鑑別判断の拠り所とするのは困難である⁹⁾。さらに穿刺細胞診については, 偽陰性や穿刺部位からの播種の問題¹⁰⁾など, 慎重に対処すべきである。

肝囊胞腺腫の治療に関しては腫瘍摘出術が行われているが, 悪性を疑った例では拡大葉切除も施行されて

いる。肝嚢胞腺腫が癌化したと考えられる肝嚢胞腺癌は18例報告⁸⁾されており、完全摘出が必要と考えられる。切除後の予後は良好である。

結 語

今回われわれは、肝嚢胞腺腫の1例を経験した。術前の画像所見より肝嚢胞腺腫と診断、腫瘍摘出術を行った。肝嚢胞腺腫は肝嚢胞腺癌の発生母地とも考えられ、積極的に腫瘍切除を行うべきである。

文 献

- 1) 川原田嘉文, 東口高志, 岡田大樹: 胆管嚢胞腺癌。肝・胆・膵 30: 519—527, 1995
- 2) Edmondson HA: Tumors of the liver and intrahepatic bile ducts. Atlas of tumor pathology. Armed Forces Institute of Pathology Section 7 Fascicle 25, Washington DC, 1958, p24—28
- 3) 沖本俊明, 長田栄一, 井川澄人他: 尾状葉より発生した肝嚢胞腺腫の1治験例。臨外 38: 1371—1375, 1983
- 4) 小林浩司, 高橋 弘, 三浦豊章他: 肝嚢胞腺腫内に発生した多発結石の1例。日臨外会誌 59: 477—481, 1998
- 5) Wheeler DA, Edmondson HA: Cystadenoma with mesenchymal stroma (CMS) in the liver and bile ducts. A clinicopathologic study of 17 cases, 4 with malignant change. Cancer 56: 1434—1445, 1985
- 6) Korobkin M, Stephens DH, Lee JK, et al: Biliary cystadenoma and cystadenocarcinoma: CT and sonographic findings. AJR 153: 507—511, 1989
- 7) 竹下浩二, 古井 滋, 原澤有美他: 肝嚢胞腺腫・腺癌の画像診断と血管造影。臨消内科 10: 1577—1581, 1995
- 8) 石田秀樹, 中村 達, 鈴木昌八他: 肝嚢胞腺腫の1例。癌の臨 42: 567—573, 1996
- 9) 小野田尚佳, 西野裕二, 池原照幸他: CEA, CA19-9, SPan-1が異常高値を示した肝嚢胞腺腫の1例。肝臓 32: 947—953, 1991
- 10) Iemoto Y, Kondo Y, Fukamachi S: Biliary cystadenocarcinoma with peritoneal carcinomatosis. Cancer 48: 1664—1667, 1981

A CASE OF CYSTADENOMA IN THE LIVER

Hiroyuki KOMORIYAMA, Takeharu ENOMOTO, Ichiro TANAKA,
Masaru HAGIWARA and Toshihito SHINAGAWA*

Departments of Surgery and Pathology*, St. Marianna University School of Medicine, Yokohama City Seibu Hospital

A 37-year-old woman was seen at our hospital because of a cystic lesion in the liver detected at a medical checkup in June, 1998. CT scan and ultrasonography revealed a multilobular cystic tumor 6 cm in size in the posterior segment of the liver. The cystic wall was smooth and thin with thickened septum partially, indicating tumorous change. Under a guide of ultrasonography, the tumor was punctured to aspirate a liquid in it. The retained fluid was serous and revealed CEA level of 2,210 ng/ml and CA 19-9 of 120,000 U/ml. Hepatic cystadenoma was suspected, but a possibility of cystic adenocarcinoma could not be ruled out. So the tumor was removed and the definite diagnosis of hepatic cystadenoma was made. So far, 34 cases of hepatic cystadenoma have been reported in Japanese literature. Hepatic cystadenoma and hepatic cystadenocarcinoma were difficult to distinguish before resection. Additionally, hepatic cystadenocarcinoma arising from hepatic cystadenoma have been reported in Japan. Since hepatic cystadenoma has malignant potential, its early resection is recommended.