

画像診断にて診断が困難であった肝硬化性血管腫の一切除例

桐山 俊弥¹⁾ 浮田 雅人¹⁾ 田口 大輔¹⁾ 手塚 隆一¹⁾ 高田 淳¹⁾ 今井 奨¹⁾
 白子 順子¹⁾ 棚橋 忍¹⁾ 川尻 真菜²⁾ 足立 尊仁²⁾ 八幡 和憲²⁾ 岡本 清尚³⁾
 齊藤 聡子⁴⁾

- 1) 高山赤十字病院内科
 2) 高山赤十字病院外科
 3) 高山赤十字病院病理診断科
 4) 高山赤十字病院同放射線科

抄 録：症例は61歳の女性。鉄欠乏性貧血および脂質異常症にて近医受診中であった。61歳時に血液検査にて γ -GTPの高値を指摘されたため、腹部超音波検査を施行した。その際に肝右葉に低エコー領域があり、造影CTにて肝S7に腫瘍性病変を認めたため当院紹介となった。腹部造影CT検査、Gd-EOB-DTPA造影MRI検査、腹部造影超音波検査等を施行するも、血流が豊富で線維化に富む病変であることが示唆されるのみであり、画像所見からは確定診断が困難であった。悪性の可能性が否定しきれなかったため、肝後区域切除術を施行した。病理所見上は海綿状に増殖する血管群に、血栓形成と器質化、線維化および硝子化（癥痕化）を伴っており、肝硬化性血管腫と診断した。肝硬化性血管腫の報告は稀であり、画像所見のみでは鑑別が困難であることが多い。確定診断がつかない症例では外科的切除も選択肢となりうると考えられた。

索引用語：肝硬化性血管腫、肝血管腫、肝腫瘍、sclerosed hemangioma

I 諸言

肝硬化性血管腫は比較的稀な疾患ではあるが、転移性肝腫瘍や胆管細胞癌などの悪性腫瘍との画像的鑑別が難しい疾患である。今回我々は、術前の画像検査にて確定診断を得ることができなかった肝硬化性血管腫の一切除例を経験したため、文献的・病理学的考察を交えて報告する。

II 症例

患者：61歳、女性。

主訴：特になし（健診異常）

現病歴：2017年5月某日に定期受診の際の血液検査にて γ -GTPの高値を指摘された。その際に施行された腹部超音波検査にて肝右葉に腫瘍性病変を指摘され、腹部造影CT検査を施行された。肝S7に30mm大の腫瘍性病変を認めたため、精査加療目的に当院紹介受診となった。

既往歴：バセドウ病、子宮筋腫

現存症：鉄欠乏性貧血、脂質異常症

常用薬：ロスバスタチン 2.5 mg/日

来院時現症：身長 157.3 cm、体重 61 kg、BMI 24.7 kg/m²、血圧 114/75 mmHg、脈拍 74 /分、

体温 36.2℃。黄疸は認めなかった。腹部は平坦軟で圧痛なし。肝脾および腫瘍性病変は触知しなかった。

初診時血液検査所見：肝胆道系酵素の異常所見はなく、肝炎ウイルスは陰性であった。腫瘍マーカーはCEA 0.7 ng/ml、CA 19-9 8.4 U/ml、AFP 2.8 ng/ml、PIVKA-2 17 mAU/mlと全て基準値範囲内であった。

腹部超音波検査所見：肝後区域に嚢胞性病変は散見されるものの、明らかな腫瘍性病変の指摘はできなかった。造影超音波検査では、肝S7に22.6 mm×22.2 mm大の等エコー腫瘍として描出され、早期より造影剤の取り込みを認めた。エラストグラフィでは肝実質と同程度の硬さを呈した。

腹部CT所見：肝S7に肝辺縁の収縮性陥凹を伴う20 mm大の不整形結節を認めた。動脈相より濃染し、平衡相にかけて内部まで造影されるパターンを呈した（Fig. 1）。腫瘍内部には造影剤による増強効果は認めなかった。

腹部MRI所見：肝S7にT1強調像にて低信号、T2強調像にて高信号な不整形結節を認めた。Gd-EOB-DTPA造影MRIでは、後期相にかけての取り込みの低下を認めた（Fig. 2）。拡散強調画像では信号の低下を認めず、悪性疾患である可能

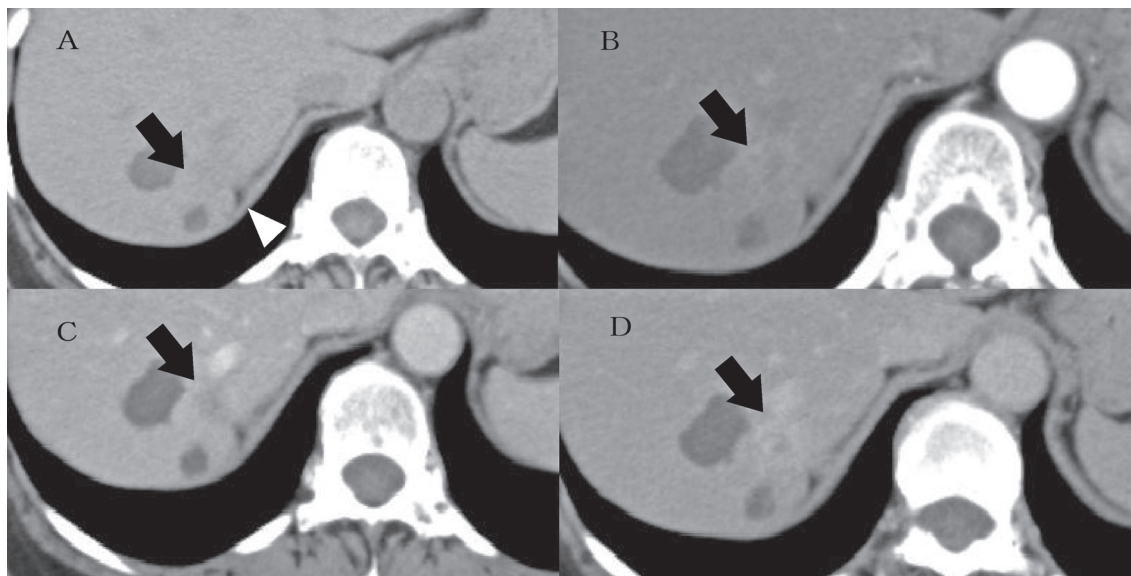


Fig. 1 . 腹部単純 CT (A) では肝 S7 に腫瘍性病変を認め (➡)、肝辺縁に収縮性陥凹を伴っていた (△)。造影 CT では早期相より腫瘍辺縁が造影され (B)、門脈相 (C) から平衡相 (D) にかけて遷延する造影パターンを呈した。腫瘍内部の造影剤による増強効果は乏しかった。

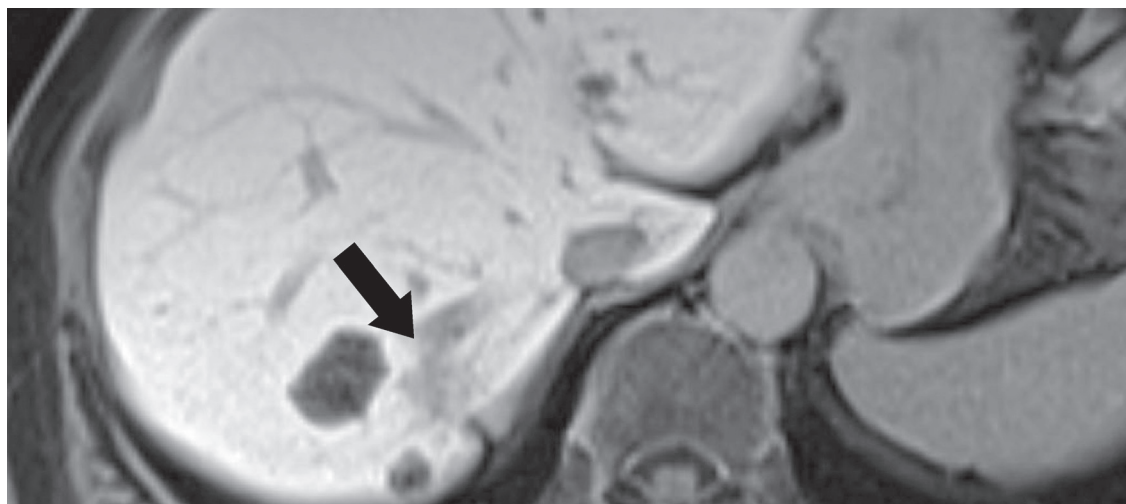


Fig. 2 . Gd-EOB-DTPA 造影 MRI 検査所見。後期相にかけて、造影剤の取り込み低下を認めた (➡)。

性は否定的であった。

その他、上部消化管内視鏡検査、下部消化管内視鏡検査、FDG-PET検査にて明らかな転移を疑わせるような異常所見は指摘できなかった。

腹部CTおよびMRIの検査結果からは線維化が強く、血流を伴う腫瘍性病変が考えられた。肝硬化性血管腫や炎症性偽腫瘍などの良性疾患の可能性は高いものの、胆管細胞癌や転移性肝腫瘍の可能性も否定しきれず、確定診断には至らなかった。患者およびその家族と十分にインフォームド・コンセントを行い、患者本人の切除希望も強かったため、2017年8月に全身麻酔下に肝後区域切除術を施行した。

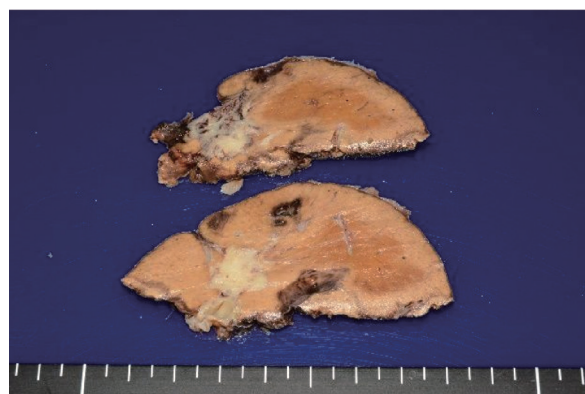


Fig. 3. 切除標本肉眼所見：15mm 大の白色調の腫瘍性病変を認める。

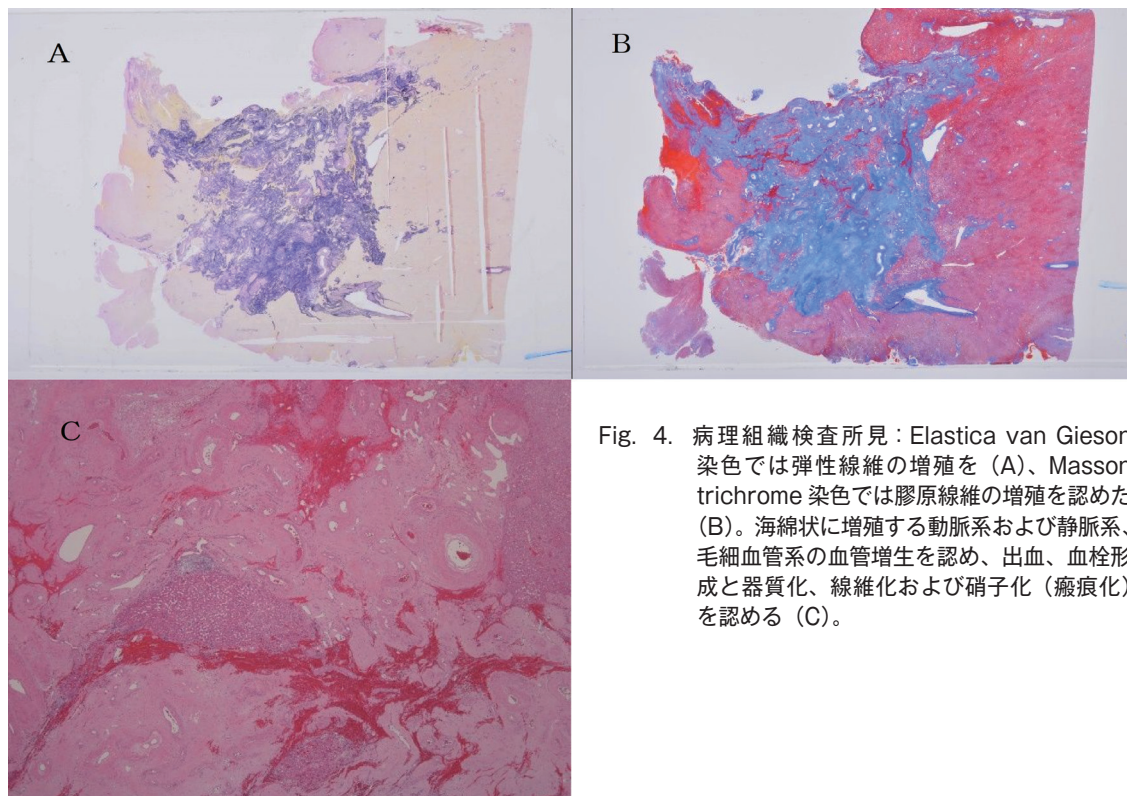


Fig. 4. 病理組織検査所見：Elastica van Gieson 染色では弾性線維の増殖を (A)、Masson trichrome 染色では膠原線維の増殖を認めた (B)。海綿状に増殖する動脈系および静脈系、毛細血管系の血管増生を認め、出血、血栓形成と器質化、線維化および硝子化（癭痕化）を認める (C)。

切除標本肉眼検査所見：径15mm程度の境界明瞭で、白色調の放射状の充実性結節を認めた (Fig. 3)。

病理組織学的検査所見：背景肝実質の脂肪変性はごくわずかで比較的良好に保たれていた。海綿状に増殖する大小の動脈系および静脈系と毛細血管が混在し、血栓形成と器質化、線維化および硝子化（癭痕化）を伴っていた (Fig. 4)。

術後経過は良好であり、術後8日目に退院となった。

Ⅲ 考察

肝臓における良性腫瘍のうちで最も頻度が高いのは、海綿状血管腫であるといわれている。肝硬化性血管腫は、海綿状血管腫が経過の遷延により、線維化や硝子化等といった二次的な変化をきたし、これらの変化が目立つものとされている¹⁾。本疾患は比較的稀な疾患であり、過去の剖検例では1000例に2例との報告がある²⁾。本邦での報告例を「肝硬化性血管腫」をキーワードに医学中央雑誌にて検索したところ（会議録を除く）、2000年から2016年の間に自験例を合わせて26例の報告

があった。宮本らは肝硬化性血管腫に対して文献的考察を行っているが、それによると平均腫瘍サイズは42.3 mmであり、腹部造影CTにて31例中27例で肝内胆管細胞癌や転移性肝癌に類似した造影効果を示し、MRIではほぼ全症例にてT1強調像で低信号、T2強調像で高信号を呈していた³⁾。

画像所見上の特徴としては、地図上の形状、肝被膜の収縮性陥凹、動脈相における周囲肝実質の区域性濃染、経時的な腫瘍サイズの縮小等が報告されている⁴⁾。中でも線維化の強い病変は、胆管細胞癌と紛らわしい像を呈する⁵⁾。自験例ではエコーでの描出が困難ではあったが、造影CTでの早期相から造影され平衡相にかけて遷延するパターンは血流を伴う疾患であることが示唆され、肝辺縁の収縮性陥凹は線維化が強い病変であると考えられた。悪性腫瘍との鑑別には、FDG-PETとの組み合わせにより画像診断能力の向上が望まれるとの意見もあり⁶⁾、MRIの拡散強調像で悪性腫瘍と比較してADC値が高くなるとも言われているため⁵⁾、これらの検査が鑑別に有効である可能性は十分に考えられる。

画像所見から明らかに悪性腫瘍が否定的である場合には、確定診断のための経皮的肝生検も選択

肢として挙げられる。しかし仮に悪性であった場合には、腫瘍細胞を播種してしまうおそれがあるため、安易に施行することはできない。自験例では二つの嚢胞に挟まれるようにして腫瘍が存在しており、腫瘍の正確な描出が困難であったこと、悪性腫瘍の否定が完全にはしきれなかったことから、経皮的肝生検は施行できなかった。そのため、診断的治療のために、肝切除術を選択したことは妥当であったと考えられる。

病理所見の特徴としては強い線維化および弾性線維の増殖が挙げられ、いくつかの症例では弾性線維に富む壁の厚い脈管が認められた⁷⁾。自験例での病理所見を考察するに、動脈系、静脈系および毛細血管が豊富に存在する集合体であり、弾性線維および膠原線維の著明な増殖を認めた。血管成分が集簇する病変は従来「血管腫」と呼称されてきたが、その中には真の腫瘍の他に先天奇形、過誤腫、反応性増殖などの様々な成因の、病態的に異なる病変が含まれてきた⁸⁾。Mullikenらによる小児における脈管異常の分析を基に、the International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA分類)が作成されているが⁹⁾、それによると旧来海綿状血管腫と呼称されていた病変は静脈奇形と分類された。血管奇形は構造異常をきたした脈管が動脈、静脈、毛細血管、リンパ管のうちどの成分からなるのかによって分類されている⁸⁾。今回のように、不均一な壁構造を呈する脈管が増殖している形態は、動静脈奇形としての要素が強いと考えられた。

血管形成のメカニズムとしては、脈管形成と血管新生の2つの要素が関与している。血管奇形は、発生学的に胎生4から10週の末梢血管系形成期に、これらの異常により生じるものとされている¹⁰⁾。自験例での病理学的な検討から、肝硬化性血管腫もこれらの要素が背景にあると考えられる。現在は分子生物学的な解析が進んでおり、今後鑑別可能なバイオマーカーの開発や分子標的療法の発展が望まれる。

IV 結語

今回我々は術前の画像診断で鑑別が困難である肝硬化性血管腫の一切除例を経験した。画像上線

維成分に富み、血流を伴う腫瘍性病変の鑑別には肝硬化性血管腫も鑑別にあげ、診断のつかない場合には外科的切除も選択肢の一つとなりうると考えられた。本疾患は十分な症例数の蓄積はないため、診断方法に関して 本症例では病理所見を合わせて、貴重な症例であると思われる。

V 参考文献

- 1) 中沼安二、坂元亨宇：血管・間葉系腫瘍およびその他、日本病理学会編、腫瘍病理鑑別診断アトラス 肝癌、文光堂、東京、2010年、142-144
- 2) Berry CL : Solitary necrotic nodule of the liver : a probable pathogenesis.
J Clin Pathol 38 : 1278-1280, 1985
- 3) Sunsuke Miyamoto, Akihiko Oshita, et. al. : Hepatic Sclerosed Hemangioma : a case report and review of the literature.
BMC Surgery 15 : 45, 2015
- 4) Doyle DJ, Khalili K et. al. : Imaging features of sclerosed hemangioma.
AJR Am J Roentgenol. 189(1) : 67-72, 2007
- 5) 松崎健司、竹内麻由美：肝血管腫および血管腫類似病変
画像診断 35(2) : 171-184, 2015
- 6) 北見智恵、河内保之、他：海綿状血管腫が併存した肝硬化性血管腫の1例
日臨外会誌 72(12) : 3120-3124, 2011
- 7) Makhoulouf HR, Ishak KG et. al. : Sclerosed hemangioma and sclerosing cavernous hemangioma of the liver : a comparative clinicopathologic and immunohistochemical study with emphasis on the role of mast cells in their histogenesis.
Liver 22 : 70-78, 2002
- 8) 堀由美子、森井栄一：血管病理における腫瘍と奇形の鑑別診断
病理と臨床 35(8) : 735-744, 2017
- 9) Wassef, M., Blei, F. et. al. : Vascular anomalies classification : recommendations from the international society for the study of vascular anomalies.

Pediatrics 136 : e203-e214,2015

- 10) 日本IVR学会、日本医学放射線学会、他編：
血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイド
ライン 2017,第2版