

## 転移性肝癌との鑑別に苦慮した多発性肝海綿状血管腫の1手術例

社会保険紀南総合病院外科, 同 病理\*

角村 純一	竹中 博昭	三木 康彰	別所 俊哉
大畑 俊裕	井上 匡美	横地 啓也	野瀬 恵介
大嶋 仙哉	永井 勲	田中 智之*	

症例は52歳の男性の開業医である。腹部超音波検査, CT 検査にて肝両葉に径3~6cmの腫瘤を計7個認めた。造影CTでは腫瘤辺縁が増強され, 肝内の分布状態から, 転移性肝癌が最も疑われた。Magnetic resonance imaging (以下MRI) では T<sub>1</sub>強調にて低信号, T<sub>2</sub>強調にて均一な高信号領域で示された。血管造影では動脈相早期から静脈相終了後までの造影剤の pooling があり, 肝血管腫の可能性も示唆された。血中 CEA 値は正常範囲で, 上部消化管造影 X 線検査, 注腸造影 X 線検査も正常であった。手術所見では肝左葉に暗赤色の斑状模様の弾力ある腫瘤の露出を認めた。診断確定のため肝左葉外側区域切除を行い, 術中迅速組織診にて海綿状血管腫の診断を得た。肝海綿状血管腫は一般に単発性が多く, 自験例のように転移性肝癌との鑑別に苦慮した症例は比較的多いとされるので文献的考察を加えて報告した。

**Key words:** cavernous hemangioma of the liver, image diagnosis of hepatic tumor, hepatectomy

### はじめに

画像診断の進歩とともに従来発見困難であった無症状の肝病変が多く認められるようになり, 慎重な治療方針の決定が必要と思われる。ここに呈示した肝海綿状血管腫症例も典型的なその1例と思われる。本症では病変の数は一般に単発性が多いとされている。

Starzl<sup>1)</sup>は肝血管腫15症例中4例が多発性であったと報告しているが, これらは大きな主病巣1個と複数の小さな副病巣の集まりであったとしている。Seo<sup>2)</sup>は海面状血管腫を7例経験し, すべて単発性であったと報告している。自験例のようにほぼ同程度の大きさで計7個もの多数の病巣が散在して, 転移性肝癌との区別が困難な症例は検索したかぎりではあまりなく, 比較的珍しい症例と思われる。

### 症 例

患者: 52歳, 男性, 開業医

主訴: なし

家族歴, 既往歴: 特記すべきものはない。

現病歴: 平成4年5月, 偶然施行した腹部エコー検査にて肝左葉に径5cm大の腫瘤を認めた。精査を希望して当科受診となった。

入院時理学所見: 胸部, 腹部とも異常を認めなかった。

入院時検査所見: 末梢血液像, 肝機能, 腎機能, 止血機能, 腫瘍 marker もすべて正常範囲内であった (Table 1)。

腹部超音波検査: 肝両葉に径30~63mmの high echoic な均一な腫瘤を計7個認めた (Fig. 1)。

腹部CT: 単純CTでは肝両葉に大小不同の low density mass が散在し, 内部は比較的均一なるも辺縁

Table 1 Laboratory data

WBC	6300/mm <sup>3</sup>	HB-Ag	(-)
RBC	431×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	HB-Ab	(-)
Hg	12.8 g/dl	HVC-Ab	(-)
Ht	38.4 %	ICG-R <sub>15</sub>	4%
Plat	23.9×10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	Bleeding time	
T.Bil	0.2 mg/dl		2 min 30 sec
GOT	44 IU/l	Prothrombin time	
GPT	23 IU/l		80 %
LDH	459 IU/l	Hepaplastin test	
ALP	109 IU/l		100 %
γ-GTP	49 IU/l	TPHA	(-)
LAP	66 IU/l	CEA	1.9 ng/dl
s-Amy	98 U/l	AFP	3.0 ng/dl
CRP	(-)	CA19-9	25 U/ml
BSR	4 mm(1hr)		
	9 mm(2hrs)		

<1993年3月3日受理>別刷請求先: 角村 純一

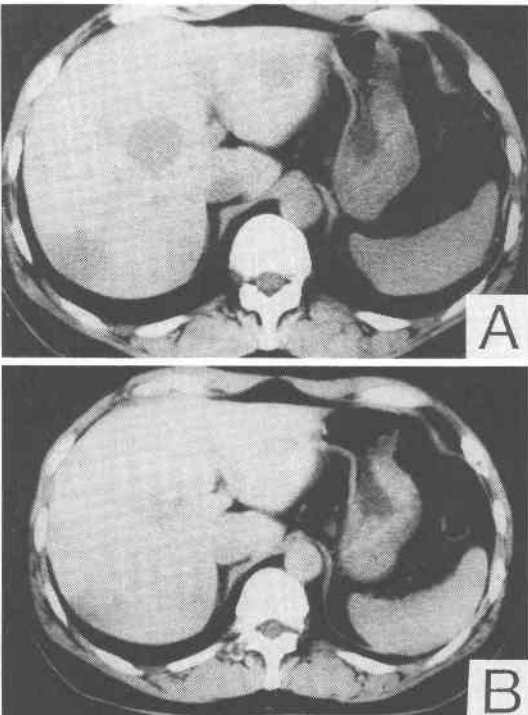
〒646 和歌山県田辺市湊510 社会保険紀南総合病院

外科

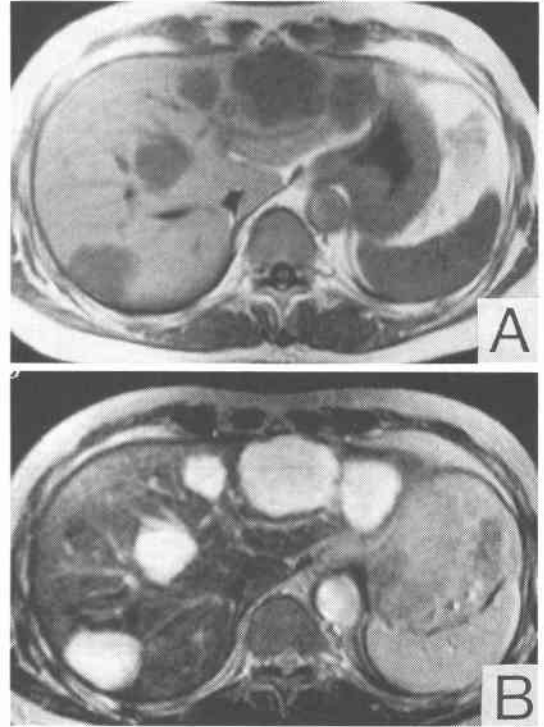
**Fig. 1** Ultrasonography: Homogeneous high echoic masses are found in both lobes of the liver. The surface of the tumors are smooth. The diameter of the tumors are ranged from 30mm to 63 mm.



**Fig. 2** Computed tomography: (A) Plain CT film showed homogeneous low density masses in both lobes of the liver. The tumor has irregular margin. (B) Peripheral area of the tumors are enhanced by contrast medium.



**Fig. 3** Magnetic resonance imaging: (A)  $T_1$  image shows multiple low intensity masses with relatively clear margin. (B)  $T_2$  image shows remarkably high intensity masses with clear margin.



は不鮮明であった(A)。点滴静注法による造影CT(B)では周辺は肝と iso density になるが、中央は low density であった (Fig. 2)。

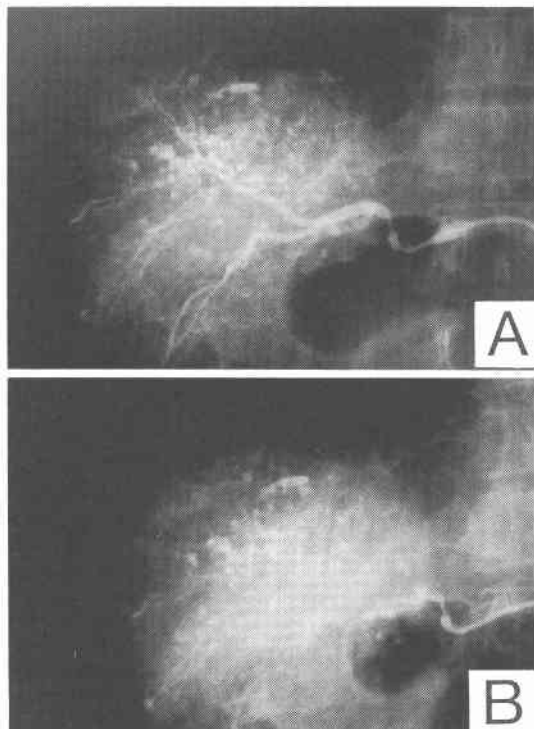
MRI (magnetic resonance imaging):  $T_1$ 強調画像(A)では腫瘍は境界の比較的明瞭な low intensity mass で、 $T_2$ 強調画像(B)ではほぼ均一な high intensity mass として認められた (Fig. 3)。

肝動脈造影: 動脈相早期(A)から腫瘍内の濃染が始まり、静脈相後(B)も長時間、造影剤の残留がみられた。腫瘍内が部分的に染まっており、腫瘍と正常肝組織との境界は明瞭ではなかった (Fig. 4)。

診断不明のまま平成4年5月26日、開腹術を施行した。

手術所見: 肝左葉外側区域の横隔膜側に径5cm、下面に3cmの露出した暗赤色斑状の弾力ある腫瘍を認めた。腫瘍2個を含めた肝左葉外側区域切除を施行した。他の臓器に血管腫の合併はみられなかった。術中

**Fig. 4** Celiac angiogram: (A) Multiple tumor stainings are recognized from the early arterial phase. (B) Pooling of the contrast medium are found even at the late venous phase.



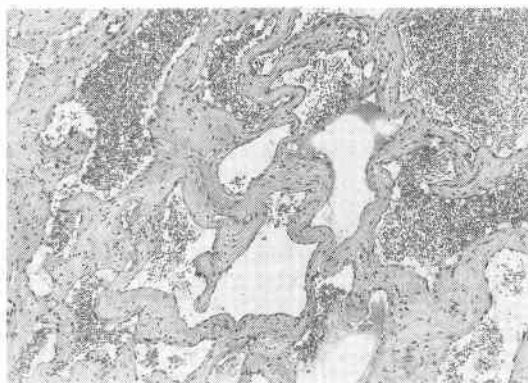
**Fig. 5** Resected specimen: Tumor has clear margin and cavernous appearance. Small tumors close to liver capsule are also found (arrows).



迅速組織診の結果は海綿状血管腫であったため手術を終了した。

摘出標本：ホルマリン固定後の切断面で、境界明瞭

**Fig. 6** Histopathological findings: Tumor is composed of proliferated vessels, which contain many red blood cells and fibrin clot in the lumen. The wall is made of fibrous connective tissue. No atypism are found to the endothelial cell. ( $\times 25$  HE stain)



な海綿状の腫瘤を認めた(Fig. 5)。Fig. 6は病理組織像である。結合織性の壁を有する大小の血管腔の増生がみられたが、内皮細胞の増生、異型性は認められなかった。

患者は術後12日目に退院した。術後6か月目の超音波検査では肝右葉に残存せる血管腫の大きさに変化はみられなかった。

#### 考 察

肝血管腫自体は決してまれな疾患ではなく、Ochsnerら<sup>3)</sup>は2,400例の剖検中55例2.3%に認めている。Iwatukiら<sup>4)</sup>は肝切除を行った肝腫瘍547例中、良性の腫瘍は219例(40.0%)であり、良性のうち114例(20.8%)は血管腫であった、としている。本症は40~60歳台に多く、男女比は1:5と女性に多く認められる<sup>5)6)</sup>。

肝血管腫は一般に毛細管状(capillary)と海綿状(cavernous)に分けられる<sup>2)</sup>。前者は小さく多発性で他臓器への浸潤が多いが、後者は一般に大きく単発性で肝内に留まることが多く<sup>2)</sup>、大部分を占める無症状のものは一般に小さいものが多いともいわれる<sup>2)</sup>。

組織学的には血管腫は赤血球で満たされる囊腫状に拡張した血管腔からなり、隔壁は比較的薄い線維性結合組織で境される<sup>3)</sup>。病因は明確でないが、先天性hamartomaの増大によるとする説がある<sup>6)9)</sup>。成長は腫瘍細胞数の増加ではなく、ectasiaによるものと考えられている<sup>9)</sup>。成長に影響を与える因子はよく分かっ

ていない<sup>6)</sup>が、女性に多いことから estrogen との関連が推測されている<sup>7)</sup>。

病変の数は一般に単発性が多いとされ<sup>1)2)</sup>、自験例のようにほぼ同程度の大きさで計7個の多数の病巣が散在し、転移性肝癌との区別が困難な症例は検索したかぎりではあまりなく、比較的珍しい症例と思われる。Adam ら<sup>10)</sup>は4cm以上の長径を有するものは何らかの症状を呈するものが多く、giant hemangioma と定義しており、これにならう論文が多い。giant hemangioma の約半数に腫瘤触知、腹満、腹痛が認められる<sup>6)9)</sup>。重篤な合併症として自然または外傷による破裂があり、致死率は70%<sup>9)</sup>といわれているが、DuPre ら<sup>7)</sup>による致命的な自然破裂報告例はわずか21例である。

診断のため、Seo ら<sup>2)</sup>は腫瘍の経皮的針生検を合併症なく7例の海綿状血管腫に施行し、正診率はそのうち4例であったと報告している。しかし、致命的な出血を来すことがあり、また診断率が低いため施行すべきではないという意見<sup>13)10)11)</sup>が多い。超音波検査では境界明瞭で均一な hyperechoic<sup>2)11)</sup>な像が特徴とされているが肝細胞癌、結節性過形成、転移性肝癌との鑑別は時として困難とされている<sup>11)</sup>。

CT像の評価を Paivansalo ら<sup>12)</sup>は66例の肝血管腫と77例の肝悪性腫瘍について検討している。その結果、悪性腫瘍では高率に不均一な像に描出されるのに対し、血管腫では均一な低吸収像で、造影により周辺が増強されるのが特徴としている。Nicholas ら<sup>11)</sup>も同様の特徴を述べているが、Seo ら<sup>2)</sup>はCTでの血管腫の特徴はないとしている。血管造影では動脈相早期からの綿花状の造影剤の長時間の貯留<sup>2)6)</sup>が特徴とされている。しかし Starzl ら<sup>1)</sup>は悪性との厳密な鑑別は不可能であるとして、血管造影は積極的に行っていない。

MRIでは DuPre ら<sup>7)</sup>は T<sub>1</sub>強調画像にて等信号、T<sub>2</sub>強調画像にて高信号な像であったと報告しており、自験例も同様であった。MRIはとくに肝血管腫の診断に有用<sup>7)</sup>と考えられており、今後の治験の集積が望まれる。自験例は術前、多発性であることやCTでの density から転移性肝癌が最も考えられたが、MRIの T<sub>2</sub>画像が極めて高信号であること、また血管造影で造影剤の長期残留がみられたことから血管腫の可能性も考えられた。画像所見を retrospective に判断すればやはり血管腫と判断すべきであったかも知れないが、まさに転移性を思わせるような肝内の多発性の分布であった点で診断を困難にした。

治療は、病巣切除により多くは症状の消失をみるた

め外科的治療を選択する報告が多い<sup>11)1)</sup>。また無症状例も含めて Starzl ら<sup>1)</sup>、Seo ら<sup>2)</sup>は本症例に対しては積極的な手術療法を勧めている。Starzl ら<sup>1)</sup>は血管腫に向かう栄養血管の安全な処理のため、亜区域や肝葉切除などの“formal”な肝切除を勧めている。切除不能症例には肝動脈結紮術が腫瘍を縮小させ、致命的な出血を防ぐ<sup>8)</sup>とされている。しかし、腫瘍内出血や感染の誘因となるため反対する意見<sup>9)</sup>もある。

本症の自然予後についての記載は少ないが、Trastek ら<sup>8)</sup>は36例の長径が平均8.8cmの巨大肝血管腫の非手術例を最高15年間(平均5.5年)観察した結果、4例にのみ径の増大をみたが、新たに症状を呈したものや出血例、死亡例を認めなかったとしている。明確に血管腫と診断できるときは、無症状の症例に対しては、この自然経過を考慮し、経過観察のみにとどめてもよいと思われる。しかし本症例のように肝表面に露出した血管腫は破裂の可能性も考慮して肝切除が最も適切な処置であろう。

#### 文 献

- 1) Ochsner JL, Halpert B: Cavernous hemangioma of the liver. *Surgery* 43: 577-582, 1958
- 2) Iwatuki S, Todo S, Starzl TE: Excisional therapy for benign hepatic lesions. *Surg Gynecol Obstet* 171: 240-246, 1990
- 3) Kawarada Y, Mizumoto R: Surgical treatment of cavernous hemangioma of the liver. *Am J Surg* 148: 287-291, 1984
- 4) Grieco MB, Miscall G: Giant hemangiomas of the liver. *Surg Gynecol Obstet* 147: 783-787, 1978
- 5) Seo JK, Lee BK, Kim KH et al: Surgical treatment of giant cavernous hemangioma of the liver. *J Korean Med Sci* 6: 127-133, 1991
- 6) DuPre CT, Fincher RM: Case report: cavernous hemangioma of the liver. *Am J Med Sci* 303: 241-244, 1992
- 7) Kato M, Sugawara I, Okada A et al: Hemangioma of the liver: diagnosis with combined use of laparoscopy and hepatic arteriography. *Am J Surg* 129: 698-704, 1975
- 8) Trastek VF, van Heerden JA, Sheedy PF et al: Cavernous hemangiomas of the liver: Resect or observe? *Am J Surg* 145: 49-53, 1983
- 9) Starzl TE, Koep LJ, Weil R et al: Excisional treatment of cavernous hemangioma of the liver. *Ann Surg* 192: 25-27, 1980
- 10) Adam YG, Huvos AG, Fortner JG: Giant hemangiomas of the liver. *Ann Surg* 172:

- 239—245, 1970
- 11) Nicholas FC, Van Heeden JA, Wieland LH :  
Benign liver tumors. *Surg Clin North Am* 69 :  
297—314, 1989
- 12) Paivansalo M, Lahde S, Jalovaara P :  
Computed tomography of hepatic haeman-  
giomas : a chance for a definite diagnosis. *Bild-  
gebung* 58 : 29—32, 1991

### **A Case of Multiple Cavernous Hemangiomas of the Liver**

Junichi Sumimura, Hiroaki Takenaka, Yasuaki Miki, Toshiya Bessho, Toshihiro Oohata,  
Masayoshi Inoue, Hiroya Yokochi, Keisuke Nose, Senya Ohshima,  
Isao Nagai and Tomoyuki Tanaka\*  
Department of Surgery and Pathology\*, Kinan General Hospital

We report a 52-year-old man with multiple cavernous hemangiomas in both lobes of the liver. The diameter of his seven tumors ranged from 30 to 63 mm. Computed tomography and ultrasonography suggested a diagnosis of metastatic liver tumors. Magnetic resonance imaging showed low intensity lesions on T1-weighted images and high intensity lesions with a clear margin on T2-weighted images. Hepatic angiography showed pooling of contrast medium from the early arterial phase to the late stage of the venous phase. From the angiography and MRI findings, hemangioma was suspected. Histopathological examination of the resected specimen revealed a diagnosis of cavernous hemangioma. Giant cavernous hemangioma is usually a solitary lesion, so our case is relatively rare and also showed interesting imaging findings.

**Reprint requests:** Junichi Sumimura Department of Surgery, Kinan General Hospital  
510 Minato, Tanabe City, Wakayama, 646 JAPAN

---