

早期食道癌をともない肝転移との鑑別を要した 肝過誤腫 (microhamartoma) の1例

横浜市立大学第2外科

高橋 徹也 渡会 伸治 望月 弘彦
仲野 明 大木 繁男 嶋田 紘

症例は56歳の女性。心窩部痛の精査中、内視鏡で早期食道癌と診断された。術前CTで肝右葉を中心に多数の低吸収領域を認め、超音波でも低エコー領域と高輝度な点状エコーの混在した像を認めた。肝生検でも確定診断はつかず、肝転移を否定できないまま手術を施行した。手術所見では肝表面に径1~3mm大の黄白色の結節を多数認め、迅速病理組織診で良性の肝過誤腫 (microhamartoma) と診断された。

本症は比較的まれな疾患で本邦における報告例は少ない。本疾患は自覚症状がなく臨床的に異常を引き起こすことはないが、画像上びまん性肝細胞癌や多発性肝転移との鑑別が問題となる。超音波検査では低エコー領域と高輝度な点状エコーの混在した不均一な像、CTでは enhance されない微細な低吸収領域が画像上の特徴である。

Key words: microhamartoma, von Meyenburg's complexes

はじめに

Microhamartoma は門脈域近傍にみられる胆管に由来する肝臓の良性の過誤腫性の疾患であるが、まれな疾患で臨床的な報告例は少ない¹⁾。本疾患が臨床問題となるのは、画像上びまん性肝細胞癌や多発性肝転移との鑑別が困難である点と考えられる²⁾。今回早期食道癌を伴った microhamartoma の1例を経験したので、その画像診断を中心に文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：56歳、女性

主訴：心窩部痛

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成4年11月より心窩部痛が出現した。平成5年6月近医にて上部消化管内視鏡検査を施行し、食道癌と診断された。平成5年7月当科へ紹介入院した。

入院時現症：身長160cm、体重33kg。結膜に黄疸、貧血なし。体表リンパ節触知せず。胸腹部に異常所見

<1995年10月11日受理>別刷請求先：高橋 徹也
〒236 横浜市金沢区福浦3-9 横浜市立大学第2外科

Table 1 Laboratory findings on admission

WBC	5,100 /mm ³	GOT	32 mU/ml
Hb	12.8 g/dl	GPT	21 mU/ml
Plt	21.6×10 ⁴ /mm ³	ALP	185 mU/ml
TP	7.1 g/dl	T-Bil	0.9 mg/dl
Alb	4.2 g/dl	D-Bil	0.2 mg/dl
BUN	19 mg/dl	ICGR15	6.9 %
Cr	0.8 mg/dl		
tumor markers			
CEA	1.3 ng/ml	CA19-9	26 U/ml
αFP	<5 ng/ml	SCC	1.4 ng/ml

なし。

入院時検査成績：末梢血液検査、生化学検査に異常所見はなく、肝機能は正常で、腫瘍マーカーの上昇も認めなかった (Table 1)。

上部消化管内視鏡検査：門歯列より30~36cmの下部食道にびらん性病変が散在し、ルゴール散布にて同部位に一致した地図状の不染帯を認めた。生検で squamous cell carcinoma と診断された。予想深達度は m と考えられた (Fig. 1)。

腹部 computed tomography (CT) 検査所見：肝右葉を中心に数 mm 前後の多数の低吸収領域を認め、境界明瞭で嚢胞状の形態を示すものや境界不明瞭な淡い

Fig. 1 Endoscopic finding reveals some erosive lesions in middle and lower esophagus (at the distance of 30 to 36cm from anterior tooth) which are not stained by Lugol's solution. We diagnosed as squamous cell carcinoma by biopsy and expect that it may be remained in the mucosal layer.

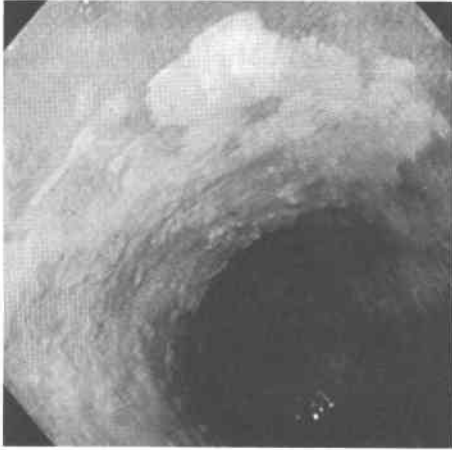


Fig. 2 Preoperative abdominal CT examination reveals multiple low density areas 5~6mm in diameter mainly in the right lobe of the liver with clear cystic or unclear margin. These lesions are not enhanced (below)

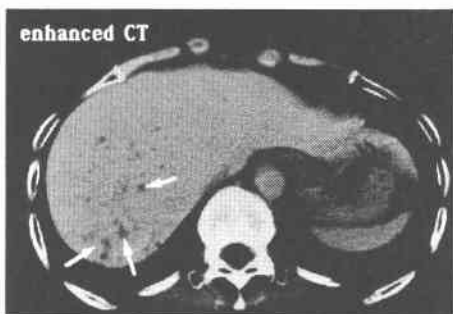
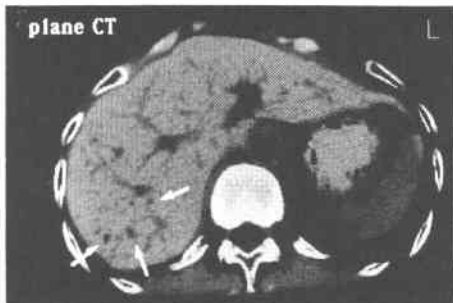
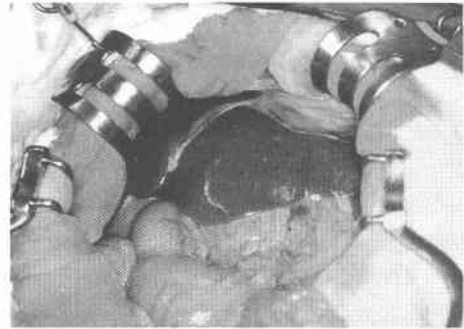


Fig. 3 Abdominal ultrasonography of the liver reveals the findings of the heterogeneous mass composed with small low echoic lesions and multiple high echoic spots.



Fig. 4 Operative findings show multiple yellow-white nodules 1~3mm diameter scattered throughout the liver. Liver is normal and metastasis can not be detected by palpation and intraoperative ultrasonography.



ものが混在していた (Fig. 2).

腹部超音波検査所見：腹部 CT 上嚢泡状に認められたものは径1~5mm 前後の低エコー領域として描出され、さらに高輝度な点状エコー像が混在していた (Fig. 3).

食道の m 癌が肝転移を起こす可能性は頻度的に極めてまれであるが、完全には転移も否定できないため、超音波ガイド下に肝生検を施行した。しかし、肝細胞の脂肪変性以外の異常を認めず、確定診断は得られなかった。

腹部 magnetic resonance imaging (MRI) 検査、腹部血管造影検査では有意な所見が得られなかった。

以上より、術前診断 E_i, 0-IIc; A₀, H₀, N₀, PL₀の

Fig. 5 Microscopic findings (H-E stain) shows cystically or irregularly dilated bile ducts in the portal area without infiltration of lymphocytes. We diagnosed it as microhamartoma (intrahepatic aberrant bile duct).

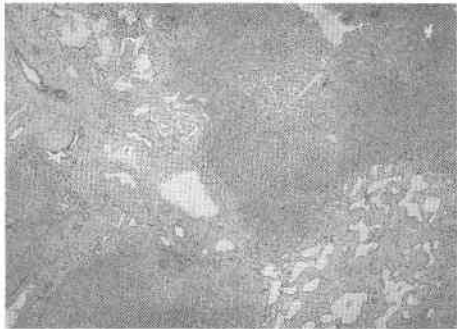
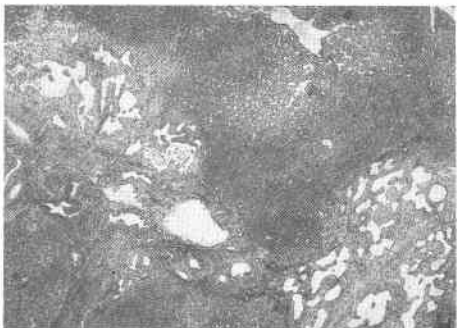


Fig. 6 Microscopic findings (Masson's stain) shows abundant fibrous stroma in the portal area.



早期食道癌と考えたが、画像上食道癌肝転移やびまん性の肝細胞癌も完全に否定できなかったため、手術は開腹操作から行った。

手術所見：肝表面に径1～3mm大の黄白色の結節が無数に存在した。肝硬変は認めなかった。肝臓の一部を切除し迅速病理組織診を行った (Fig. 4)。

病理組織学的所見：Hematoxylin & eosin (HE) 染色では、門脈域において胆管の拡張と増生を認めた。これらの胆管と固有胆管との間に連続性は認めなかった (Fig. 5)。

Masson 染色では、さらに線維性間質の増生が確認された (Fig. 6)。

組織学的に悪性所見はなく、良性の過誤腫 (microhamartoma) と診断した。

よって Stage I (A₀, N₀, H₀, PL₀, M₀) の食道癌と診断し³⁾、手術は D₁ 郭清を伴う非開胸食道抜去術を

施行し治癒切除を得た。

術後経過：術後経過は良好で、第32病日退院し、術後563日目の現在再発の兆候なく外来通院中である。

考 察

Microhamartoma は1906年 Moschowitz⁴⁾ によって intrahepatic aberrant bile ducts として最初に報告され、1918年 von Meyenburg⁵⁾ によって確立された疾患である。本疾患は門脈域グリソン鞘周囲の胆管の拡張や増生と線維性間質から構成される良性の過誤腫性病変であり、増生した胆管は固有の胆管系との間に交通はないと言われている⁶⁾。本疾患は別に von Meyenburg's complexes⁵⁾、multiple bile duct hamartomas⁷⁾ など様々な呼称がある。

本疾患は欧米では剖検例⁷⁾⁸⁾や肝生検例⁹⁾¹⁰⁾の病理組織学的検索にて1%前後の頻度で認められるとされる。本邦では剖検例1,124例中118例、10.5%に認めたとする報告もあるが¹⁰⁾、臨床的報告例はまれである¹⁾²⁾。

本疾患の発生原因として肝内胆管の先天性の形成障害説⁵⁾、退行障害による遺残胆管説⁴⁾があり、多発性肝嚢胞症例に高頻度に認められることから多発性肝嚢胞の発生母地と考えられている¹¹⁾。

Homer ら¹²⁾は本疾患から発生したと考えられる胆管細胞癌の報告をしており、また本邦では田中ら¹³⁾、稲垣ら¹⁴⁾が本疾患に合併した肝細胞癌を報告しているが、これらは極めてまれで、一般には自覚症状もなく、本疾患のために臨床的な異常をきたすことはない。むしろ本疾患が臨床問題となるのはCT、超音波画像上びまん性肝細胞癌や多発性肝転移との鑑別が困難である点と考えられ、切除不能のびまん性肝細胞癌と誤診され、TAEを施行された報告もある²⁾。

本疾患は超音波上、hyperechoic な領域と hypoechoic な領域とが混在し、肝全体として不均一な高輝度の点状エコー像として認められる。さらに肝静脈の不鮮明化も特徴のひとつとされる²⁾¹⁶⁾。これらの所見は本疾患が多数の小嚢胞体の集合体であるという組織学的構築を反映している。すなわち、嚢胞が極めて小さいためにこの嚢胞の前後壁の間で生じる多重反射、あるいはこの嚢胞を取り囲む厚い線維性間質により生じる多重反射により高輝度エコーの点在した不均一な像が生じると考えられている⁹⁾¹⁰⁾。また症例によって嚢胞の大きさや密度に違いがあれば、これらの不均一さの程度にも差が生じてくるものと考えられる。

本疾患のCT所見も同様に、造影にて enhance され

ない多発する微細な低吸収域領域として描出される。

これらの画像所見からびまん性肝細胞癌や多発性肝転移を鑑別するためには、高輝度エコー像・低吸収領域の分布状況、肝表面や辺縁の性状、2mm前後の小嚢胞の存在などを考慮にいれること¹⁵⁾と頻度的に1%程度に本疾患が認められることを念頭におくことが肝要であると考えられる。

確定診断には病変部の病理組織学的検索が必要であるが、本症例では確定診断がつかず開腹操作から手術を施行した。

血管造影では静脈相においてぶどうの房状に集合した小さな輪状陰影を呈するとされる²⁾が診断に際してはあまり実際的ではなく有用と思われない。

文 献

- 1) 高森成之, 古木武司, 乾 増幸ほか: multiple microhamartoma の2例. 松仁会医誌 29: 65—70, 1990
- 2) 佐藤 裕, 原岡誠司, 久次武晴ほか: びまん性肝細胞癌に類似した画像所見を呈した多発性胆管過誤腫の1症例. 腹部画像診断 9: 317—321, 1989
- 3) 食道疾患研究会編: 食道癌取扱い規約. 第8版. 金原出版, 東京, 1992
- 4) Moschowitz E: Non-parasitic cysts (congenital) of the liver with a study of aberrant bile ducts. Am J Med Sci 131: 674—699, 1906
- 5) von Meyenburg H: Uber die Cystenleber. Beitr Pathol Anat Allg Pathol 64: 477—532, 1918
- 6) 円山英昭: 肝臓の von Meyenburg complex—文献的考察. 最新医 42: 116—123, 1987
- 7) Chung EB: Multiple bile-duct hamartomas. Cancer 26: 287—296, 1970
- 8) Thommesen N: Biliary hamartomas (von Meyenburg complexes) in liver needle biopsies. Acta Pathol Microbiol Scand [A] 86: 93—99, 1978
- 9) Henning H, Friedrich K, Luders CJ: Laparoskopischer Aspekt und Klinische Relevanz von Cholangiofibromen. Z Gastroenterology 20: 744—751, 1982
- 10) 西上隆之, 松岡孝昌, 中西恵二ほか: 肝の von Meyenburg complex の病理発生学的考察. 日病理会誌 77: 248, 1988
- 11) Melnick PJ: Polycystic liver. Arch Pathol 59: 162—172, 1955
- 12) Homer LW, White HJ, Read RC: Neoplastic transformation of von Meyenburg complexes of the liver. J Pathol Bacteriol 86: 499—502, 1968
- 13) 田中 宏, 酒井克治, 木下博明ほか: Microhamartoma に合併した肝細胞癌の1切除例. 肝臓 30: 82—87, 1989
- 14) 稲垣 豊, 木谷 恒, 樋上義伸ほか: von Meyenburg complex を認めた肝細胞癌・胆管細胞癌の混合型の1例. 肝臓 26: 928—933, 1985
- 15) 白木克哉, 伊藤信康, 田川新生ほか: von Meyenburg complex の超音波像. 日超音波医学会57回研究発表会講論集: 901—902, 1990
- 16) 旭百合子, 鈴木卓爾, 川野正樹ほか: von Meyenburg's complex 症例の超音波像. 日超音波医学会47回研究会講論集: 35—36, 1985

Microhamartoma of the Liver with Early Esophageal Cancer

Tetsuya Takahashi, Shinji Togo, Hirohiko Mochizuki, Akira Nakano,
Shigeo Ohki and Hiroshi Shimada
The Second Department of Surgery, Yokohama City University

A 56-year-old woman was admitted to our department complaining of epigastralgia, and was endoscopically diagnosed with early esophageal cancer. Preoperative computed tomography (CT) showed multiple low density areas in the right lobe of the liver. Abdominal ultrasonography (US) showed the characteristic findings of small, low echoic lesions with multiple high echoic spots. Needle biopsy could not determine the histological finding preoperatively. We diagnosed metastasis of the liver from the early esophageal cancer. Operative findings included multiple yellow-white nodules 1-3 mm in diameter scattered throughout the liver, and histological study of the wedge biopsy specimen revealed benign microhamartoma. Microhamartoma of the liver, which is a rare disease, may be mistaken for diffuse hepatocellular carcinoma or multiple metastases due to their similar appearance in imaging. But findings of a mixture of small low echoic lesions and multiple high echoic spots on US and enhanced small low density areas on CT would indicate microhamartoma of the liver.

Reprint requests: Tetsuya Takahashi The Second Department of Surgery, Yokohama City University
3-9 Fukuura Kanazawa-ku Yokohama City, 236 JAPAN