

画像診断上興味ある形態変化を呈した肝嚢胞腺癌の1例

厚生連高岡病院外科

宇野 雄祐 平野 誠 川口 雅彦
村上 望 野澤 寛 吉野 裕司
塚山 正市 太田 尚宏 橘川 弘勝

症例は55歳の女性。1997年8月に検診の腹部超音波検査で肝内側区に8cm大の単房性嚢胞を発見された。腹部CT検査では、嚢胞内壁は平滑で、内腔は均一な低吸収性単房性嚢胞であった。1998年10月27日、背部痛を主訴に当科を受診した。腹部超音波検査で、嚢胞の内部に2.5cm大の小嚢胞を認めた。腹部CT検査では、嚢胞壁に内腔へ突出する乳頭状隆起もみられた。動脈造影下CT検査では、嚢胞壁、嚢胞内腔の不整隆起、および小嚢胞壁が造影された。以上より、肝嚢胞腺癌の疑いで肝内側区区域部分切除術を行った。切除標本では嚢胞壁内に小嚢胞以外にも微小嚢胞を認めた。病理組織学的検査では、嚢胞壁全体と小嚢胞壁は癌組織であるが、微小嚢胞の内壁は腺腫と診断された。本症例では、肝嚢胞腺腫から肝嚢胞腺癌が発生したものとされた。さらに、経過観察中に認められた嚢胞の形態変化は、癌細胞の増殖によってもたらされたものと考えられた。

はじめに

肝嚢胞腺癌は肝内胆管由来の上皮性悪性腫瘍であり、その頻度は原発性肝癌の0.2%と報告されている¹⁾。近年の画像診断の進歩とともに肝嚢胞腺癌の報告例は増加しているが、経時的な観察が行われた報告は少ない。今回、われわれは画像診断上興味ある形態変化を確認できた肝嚢胞腺癌の1例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

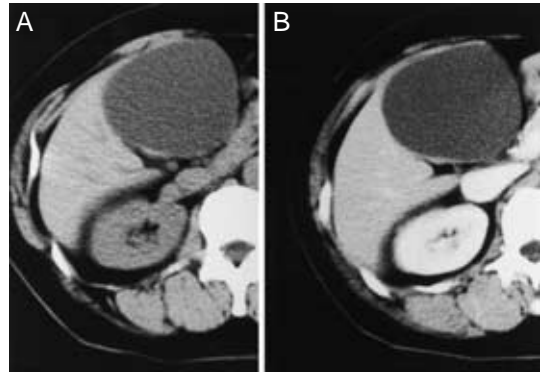
患者：55歳，女性

主訴：背部痛

既往歴，家族歴：特記事項なし。

現病歴：1997年8月，他院の人間ドックを受診し，腹部超音波検査で肝内側区に均一な内部エコーを呈する8cm大の単房性嚢胞性病変を指摘された。腹部 computed tomography(以下，CT と略記)検査では，肝内側区に8cm大の均一な低吸収性嚢胞性病変を認めた。嚢胞内壁は平滑であり，造影CT検査で壁の濃染像は認めなかった(Fig. 1)。精査を勧めたが，患者の承諾が得られず経過観察が行われていた。1998年10月27日背部痛を主訴に当科を受診し，精査加療目的で入院となった。

Fig. 1 (A) Unenhanced CT scan reveals a low attenuating cystic lesion with the smooth wall.(B) Contrast enhanced CT scan reveals no enhanced wall of the lesion.



入院時現症：身長156cm，体重59kg。貧血，黄疸を認めず，肝脾は触知しなかった。

入院時検査成績：血液生化学検査では異常値を認めなかった。腫瘍マーカー(carcinoembryonic antigen, carbohydrate antigen 19 9, alpha-fetoprotein)も正常範囲内であった。

腹部超音波検査所見：肝内側区に高エコースポットを有する内容物を伴う不均一な8cm大の嚢胞性病変を認めた。さらに，嚢胞壁の一部から内腔に突出する

Fig. 2 (A) CT scan reveals a large cystic lesion of low density with a small cyst of lower density and with a papillary solid component of higher density . (B) The papillary solid component is poorly enhanced by contrast drug (arrow)

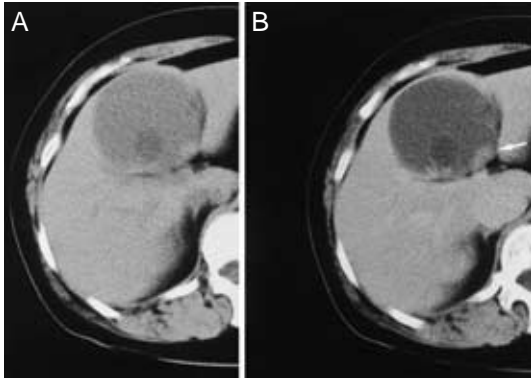
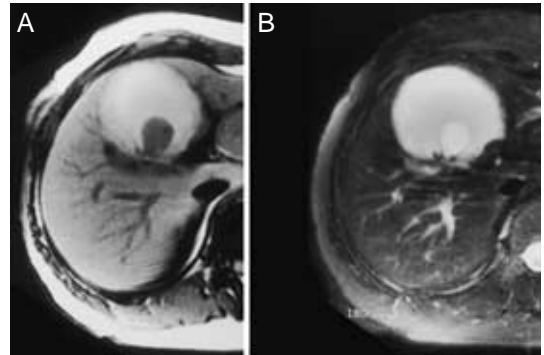


Fig. 3 Magnetic resonance imaging.(A) T1 weighted image reveals a large cystic lesion of heterogeneous high intensity with a small cyst of low intensity(B) T2 weighted image reveals the large cystic lesion of high intensity with the small cyst of higher intensity.



2.5cm 大の小嚢胞を認めた .

腹部 CT 検査所見：肝内側区に8cm 大の低吸収性嚢胞性病変を認めた . 腹部超音波検査で指摘された小嚢胞は、低吸収結節として描出された . また、嚢胞壁から内腔へ突出する乳頭状隆起も描出され、造影剤の投与による濃染を認めた (Fig. 2) .

腹部 magnetic resonance imaging (以下、MRI と略記) 検査所見：T1強調像で嚢胞内は不均一な高信号、小嚢胞内は低信号を示した . T2強調像で嚢胞内は高信号、小嚢胞内はさらに強い高信号を示し、嚢胞内容は粘液または血液と考えられた (Fig. 3) .

内視鏡的逆行性胆管膵管造影検査所見：B4が大きく弧状に圧排進展されていた . 胆管と嚢胞との交通は認められなかった .

腹部血管造影検査所見：動脈相では A4が弧状に圧排進展されていた . 実質相では病変の大部分は avascular であったが 嚢胞壁に一致する部分に輪状の濃染像を認めた (Fig. 4) .

動脈造影下 CT 検査所見：嚢胞壁は均一に造影され、小嚢胞壁も造影された . 小嚢胞近傍の嚢胞壁に内腔へ突出する乳頭状の濃染像がみられた (Fig. 5) .

Fig. 4 Angiography reveals the exclusion of the A4(arrow)at the arterial phase(A) and the ring-like tumor stain at the capillary phase (B)

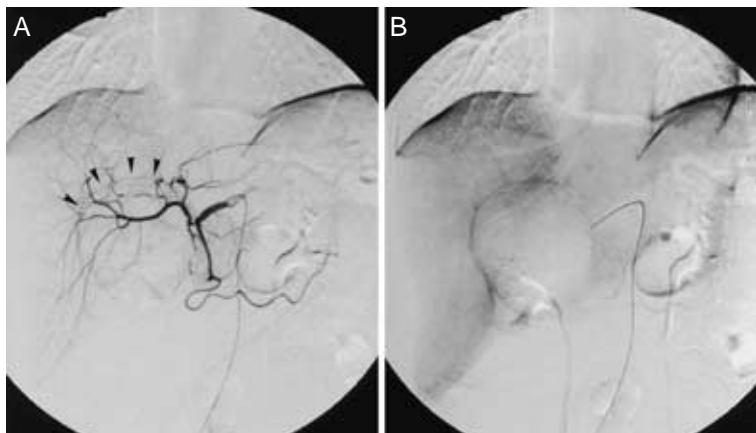


Fig. 5 CT scan during angiography reveals that the large and small cyst and the papillary solid component (arrow) are hypervascular.

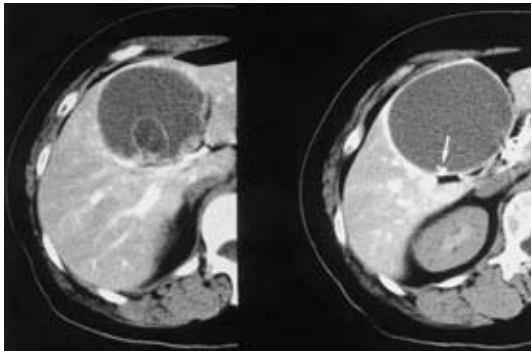
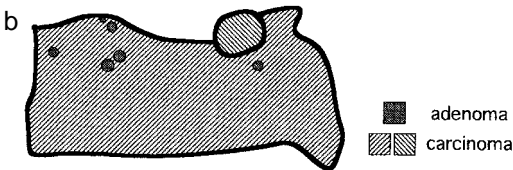


Fig. 6 a : Photograph of resected liver shows a large cystic tumor measuring 8.5 × 7.8 × 7.2cm in size, and containing a small cyst with 2.5cm (↑) in diameter and some tinny cysts () b : Diagram of a

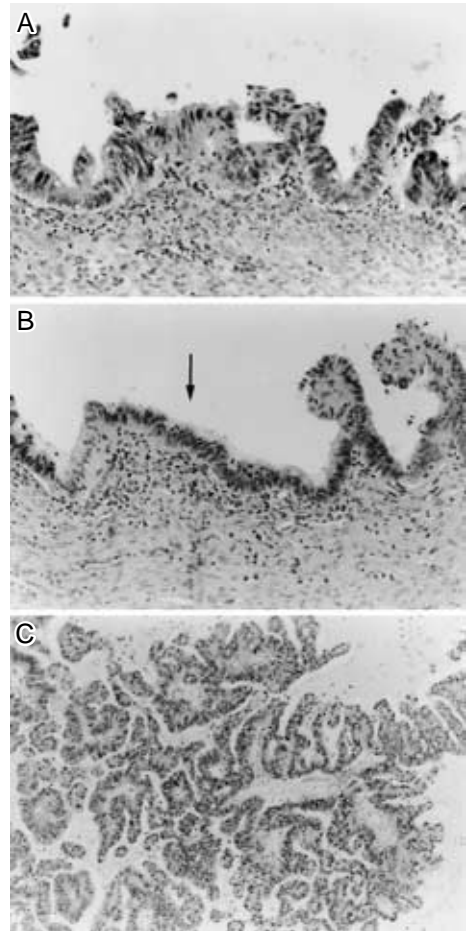


以上から、肝嚢胞腺癌を強く疑い、1998年11月11日手術を施行した。

手術所見：腫瘍は肝内側区域を占居する境界明瞭な嚢胞性病変であり、隣接臓器への浸潤はなかった。腫瘍全体を含む肝内側区域部分切除術を行った。

切除標本肉眼所見：肝内側区域に8.5 × 7.8 × 7.2cm

Fig. 7 Histological findings of the tumor.(A) The wall of large and small cysts is composed of carcinoma cells.(B) The wall of tinny cysts is composed of adenoma cells. Transitional portion is found between atypical cells and adenoma cells(arrow).(C) In the intracystic tumor, papillary carcinoma cells are shown.



の嚢胞状腫瘍を認めた。嚢胞の内容は血性で、脱落した腫瘍成分も含まれていた。これは術前画像診断でみられた乳頭状隆起が脱落したと考えられた。腫瘍断面では、嚢胞の内壁に2.5cm 大の小嚢胞と、より小さい微小嚢胞が散在していた。なお、嚢胞外への浸潤性増殖はみられず、切除断端に腫瘍は認めなかった(Fig. 6)。原発性肝癌取り扱い規約²⁾では、M, St, H1, Eg, Fc(+), Fc-inf(-), Sf(+), S0, N(-), Vp0, B0, IM0, P0, M0, Z0, Hr1, R0, TW(-), Stage II

であった。

病理組織学的所見：嚢胞壁および2.5cm大の小嚢胞壁は、高度の異型性を有し一部多層化した高円柱上皮細胞で裏うちされており、腺癌と診断された。腫瘍断面でみられたさらに小さい微小嚢胞壁は、異型が軽度な一層の立方円柱上皮で裏うちされており腺腫と考えられ、腺癌との移行部が確認された。また、嚢胞壁外への腫瘍細胞の浸潤は認めなかった。なお、嚢胞内容液中には乳頭状の腫瘍細胞を認めた (Fig. 7)。以上から肝嚢胞腺癌と診断された。

考 察

肝嚢胞腺癌(以下、本症)の報告は、1943年 Wills³⁾によってはじめてなされた。本邦では1998年までに91例が集積されており⁴⁾、比較的古まれな疾患である。近年の画像診断学の進歩により、本症を含む嚢胞形成性悪性肝腫瘍の発見頻度は増加している。その分類や名称について諸家の意見は一致していないが、川原田ら⁵⁾による嚢胞形成性悪性肝腫瘍の分類が広く用いられている。彼らは嚢胞形成性悪性肝腫瘍を肉眼的に胆道との交通が明らかでない肝内胆管由来の嚢胞性腺癌、肝内胆管の拡張を伴う肝内胆管癌、腫瘍中心部壊死による degeneration cyst の3つに分類している。さらに、嚢胞性腺癌をその成因に基づき、de novo type の嚢胞腺癌 (type I)、嚢胞腺腫から癌化した肝嚢胞腺癌 (type II)、単純性肝嚢胞からの癌化 (type III) に分けている。Mizumoto ら⁶⁾による嚢胞性腺癌65例の検討では、type III が80%で最も多く、type I が14%、type II が6%であった。自験例は、画像診断上胆管との交通を認めず、組織学的に腺腫と腺癌が混在していたことより、type II の肝嚢胞腺癌と推測された。

本症の画像診断所見の特徴は、腹部超音波検査や腹部 CT 検査において単房性あるいは多房性嚢胞、およびその嚢胞壁から内腔に乳頭状に発育する充実性部分が描出されることである。また、造影 CT 検査で充実性部分は造影され、動脈造影では嚢胞部分に一致する既存血管の弧状の圧排偏位所見と、腫瘍部分の血管増生や濃染像がみられる⁷⁾。自験例における初回発見時の肝嚢胞は、平滑な内腔を有する単房性嚢胞であり単純嚢胞との鑑別が問題となった。しかし、前述の本症に特徴的な画像所見は壁在充実性部分が微小である場合は描出されない⁷⁾。したがって、この時点で MRI 検査や血管造影検査を施行しても本症と診断することは困難であったと思われる。14か月の間に生じた嚢胞壁の形態変化により、嚢胞性病変の質的診断が可能になっ

ことは明白である。切除後の病理組織学的検索では、嚢胞壁および小嚢胞壁とも癌組織であった。したがって、経過観察中に出現した壁在小嚢胞は、異型細胞の増殖に伴って微小嚢胞が増大したものと推測された。

嚢胞腺腫や単純嚢胞が癌化に至る自然経過に関する報告は少ない。嶋田ら⁸⁾は単純嚢胞として経過観察中に癌化したと考えられる肝嚢胞腺癌の10例を集計している。このうち組織学的に単純嚢胞からの癌化と確認されたのは9例であり、嚢胞腺腫からの癌化と確認されたのは1例のみであった⁹⁾。自験例のように、type II の肝嚢胞腺癌で画像上単房性嚢胞と診断された病変からの形態変化を確認できた報告はみられない。

近年、鏡視下手術の普及に伴い、腹腔鏡下嚢胞開窓術が行われるようになった¹⁰⁾。しかし、自験例のように単房性嚢胞であっても嚢胞腺腫あるいは嚢胞腺癌である可能性もある。また、嶋村ら¹¹⁾の報告のように、腹腔鏡下肝嚢胞開窓術後の病理学的検索で嚢胞腺癌が判明した症例もあることから、肝の嚢胞性病変を治療する際にはつねに本症を念頭においた慎重な術前検査が必要である。

本論文の要旨は第54回日本消化器外科学会総会(1999年、名古屋)で発表した。

また、病理学的御指導を頂いた厚生連高岡病院病理科増田信二先生に深謝いたします。

文 献

- 1) 日本肝癌研究会：原発性肝癌に関する追跡調査第11報。肝臓 36：208-217, 1995
- 2) 日本肝癌研究会編：臨床・病理 原発性肝癌取り扱い規約。金原出版、東京、1992
- 3) Wills RA: Carcinoma arising in congenital cysts of the liver. J Pathol Bact 55: 492-495, 1943
- 4) 横山省三, 谷口勝俊, 小林康人ほか：肝嚢胞腺癌の1例と本邦報告例の検討。和歌山医 49: 91-98, 1998
- 5) 川原田嘉文, 田岡大樹, 水本龍二：胆管細胞癌をめぐる諸問題, 嚢胞性腺癌 成因と分類。肝胆膵 24: 261-268, 1992
- 6) Mizumoto R, Kawarada Y, Taoka H: A new classification of cystic malignant tumors of the liver: Classification of 65 cases reported at the 26th Annual Meeting of the Liver Cancer Society. J Gastroenterol Hepatol 6: 400-407, 1991
- 7) 吉川 淳, 松井 修：肝悪性腫瘍。松井 修編。肝の画像診断。医学書院、東京、1995, p181-182
- 8) 嶋田義孝, 西田 修, 井上文彦ほか：肝嚢胞として経過観察され16ヶ月後に切除された肝嚢胞腺癌の1例。滋賀医大誌 34: 34-38, 1996

- 9) 植田 豊, 伊藤義人, 時田和彦ほか: 術前に magnetic resonance imaging(MRI)で評価しえた肝嚢胞腺癌の1例. 日消病会誌 91 : 100 104, 1994
- 10) 平田公一, 山城一弘, 向谷充宏: 腹腔鏡下肝嚢胞開

- 窓術. 手術 48 : 901 907, 1994
- 11) 嶋村 剛, 宇根良衛, 中島保明ほか: 術前に嚢胞腺腫との鑑別が困難であった肝嚢胞腺癌の1治験例. 日臨外医会誌 53 : 594 599, 1995

A Case of Biliary Cystadenocarcinoma Which Showed an Interesting Change of Shape in the Radiographic Appearance

Yusuke Uno, Makoto Hirano, Masahiko Kawaguchi, Nozomu Murakami, Hiroshi Nozawa, Hiroshi Yoshino, Shoichi Tsukayama, Naohiro Ohta and Hirokatsu Kikkawa
Department of Surgery, Koseiren Takaoka Hospital

In August 1997, abdominal ultrasonography during a physical examination of a 55-year-old female revealed a unilocular cyst measuring 8 cm in the medial segment. Abdominal computed tomography (CT) showed a low absorption unilocular cyst with a smooth inner wall and flat lumen. On October 27, 1998, the patient consulted our department for back pain. Abdominal ultrasonography revealed a small cyst measuring 2.5 cm within the cyst. Abdominal CT showed papillary swelling on the cystic wall, which protruded into the lumen. CT arteriography showed irregular swelling involving the cystic wall and cystic lumen as well as the small cyst. A preoperative diagnosis of hepatic cystadenocarcinoma was made, and partial resection of the medial hepatic segment was performed. The resected specimen revealed microcysts in addition to the small cyst in the cystic wall. Histopathological examination showed that the entire cystic wall and the wall of the small cyst consisted of cancer tissue, and that the inner wall of the microcysts consisted of adenoma. Hepatic cystic adenoma may have caused the hepatic cystadenocarcinoma in this patient. In addition, the morphological changes in the cyst observed during follow-up were considered to be related to cancer cell proliferation.

Key words : biliary cystadenocarcinoma, biliary cystadenoma, liver cyst

[Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 1780 1784, 2000]

Reprint requests : Yusuke Uno Department of Surgery, Koseiren Takaoka Hospital
5 10 Eiraku-cho, Takaoka, 933 8555 JAPAN