

症例報告

24 歳の女性に発生した fibrolamellar carcinoma の 1 切除例 本邦報告例の集計を含めて

熊本赤十字病院外科, 同 消化器科¹⁾, 同 病理部²⁾

横溝 博 山口 賢治 一二三倫郎¹⁾ 林 亨治
平田 稔彦 寺倉 宏嗣 山根 隆明 川口 哲¹⁾
福田 精二²⁾ 松金 秀暢

症例は 24 歳の女性で, 職場の健康診断で施行された腹部超音波検査にて 6cm 大の肝右葉の腫瘍性病変を指摘され当院に紹介された。CT にて腫瘍は中心性癒痕の部分を除いて強い早期濃染を示し, Superparamagnetic iron oxide (SPIO) enhanced MRI では取込みを認めず著明な高信号を呈し fibrolamellar carcinoma (FLC) が疑われた。肝右葉切除が行われ, 病理組織学的に強い好酸性を示す大型の腫瘍細胞が層状の膠原線維により区画されており FLC と診断された。FLC は通常型肝細胞癌とは異なる臨床病理学的特徴を有し, 肝硬変のない若年者に好発する。しばしばリンパ節転移を伴うことから治療にあたっては肝切除に加えリンパ節郭清を行う必要がある。FLC に関する本邦報告例の集計 52 例を含め文献的考察を加えて報告する。

はじめに

原発性肝癌の特殊型として fibrolamellar carcinoma (FLC) が存在する。FLC は通常型肝細胞癌 (hepatocellular carcinoma; HCC) と比べ 10 ~ 20 歳代の若年者に多く, 肝硬変などの基礎疾患のない肝に発生するなどの特徴がある^{1)~3)}。欧米では原発性肝癌の 1 ~ 2% を占めるとされているが本邦では極めてまれである。今回, 我々は 24 歳の女性に発生した FLC に対し肝右葉切除術を施行した。本邦報告例の集計を含め文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 24 歳, 女性

既往歴: 特記すべきことなし。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 平成 15 年 1 月職場の健康診断で施行された腹部超音波検査にて肝右葉の腫瘍性病変を

指摘され当院に紹介された。

入院時現症: 身長 156cm, 体重 43kg, 血圧 118/72mmHg, 脈拍 84/分, 体温 36.7。黄疸, 貧血は認めず, 腹部は平坦, 軟で肝脾は触知しない。

入院時検査所見: HBs 抗原, HCV 抗体はともに陰性で ICG R15: 3.4% と肝機能は良好であった。腫瘍マーカーは AFP: 4ng/ml, PIVKA-II: 28mAU/ml と正常範囲内, その他血液生化学所見には異常は認めなかった。

US: S7/8 に中肝静脈に接する最大 65mm の腫瘍像を認めた。内部エコーは不均一で点状の hyperechoic spot も見られた (Fig. 1)。

CT: S7/8 に多結節状の約 5cm の mass lesion があり, plain CT ではやや low density を示し, dynamic study で強い早期濃染を示すが中心性癒痕の部分は増強効果を認めない (Fig. 2)。

MRI: T1 強調画像でやや低信号, T2 強調画像ではほぼ等信号で一部高信号を示す腫瘍は, SPIO-enhanced MRI では取込みを認めず著明な高信号を呈するが中心性癒痕の部分は低信号と

なっている(Fig. 3). ^{99m}Tc フチン酸シンチでは肝右葉の腫瘍に一致して欠損像を呈した. 以上より, FLCの診断のもと平成15年3月31日に手術を施行した.

手術所見: 肝右葉 S7/8 に手拳大の腫瘍を認めたが多発病変, リンパ節腫脹, 腹膜播種や腹水は認めなかった. 手術は肝右葉切除術およびリンパ節郭清を施行した. 原発性肝癌取り扱い規約の肝細胞癌の項に準じて記載すると AP, St, H2, Eg, Fc(-), Sf(-), S0, N0, Vp0, Vv2, Va0, B0, IM0, P0, SM(-), NL, T3, M0, Stage III, Hr2, D(+), 治癒度 Bであった.

摘出標本: 切除肝重量は1,050g で非腫瘍部に

は肝硬変は認めなかった. 腫瘍は最大径6.6cm, 黄緑色調を呈し, 多結節集簇性であり被膜形成は見られず, 腫瘍の一部には中心性癒痕が認められた(Fig. 4).

Fig. 1 Ultrasonography shows a 65mm sized heterogeneous mass with hyperechoic spot adjacent to middle hepatic vein.



Fig. 2 (a) A plain CT shows a low density mass in the right lobe of the liver. (b) At the arterial phase of contrast-enhanced CT, the mass is well enhanced except for a central fibrous scar.

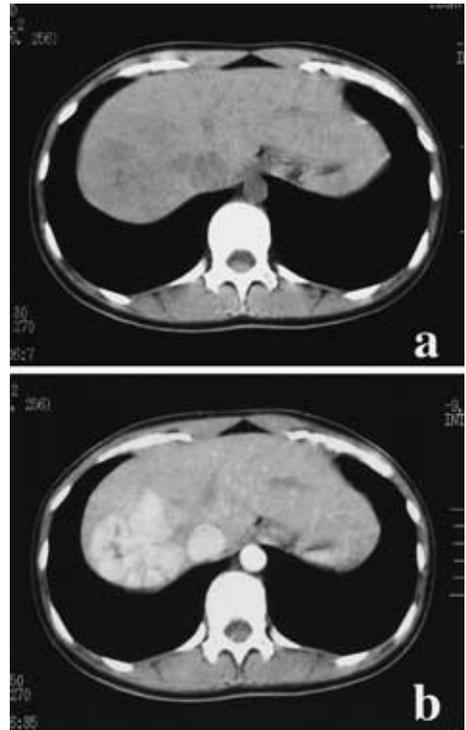
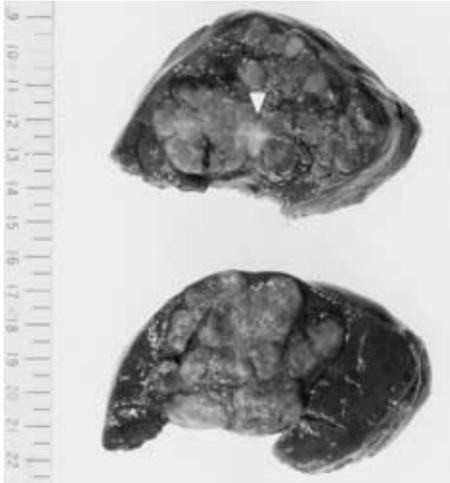


Fig. 3 (a) T1-weighted MRI shows low intensity mass. (b) T2-weighted MRI shows iso-intensity mass with partial high intensity area. (c) Superparamagnetic iron oxide (SPIO)-enhanced MRI shows high intensity tumor and low intensity central scar.



Fig. 4 Macroscopic findings of resected specimen. The tumor showed multinodular appearance without capsule formation and yellowish green in color. The surrounding non-tumorous liver parenchyma is not cirrhotic. Note the central fibrous scar (arrow head)



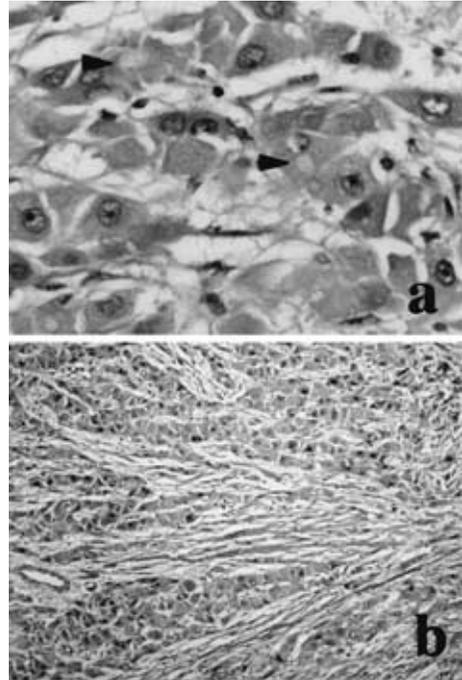
病理組織学的所見：強い好酸性を示す大型，多角形で，一部に pale body を有する腫瘍細胞が層状の膠原線維により区画されており FLC との診断が確定した (Fig. 5)。

術後経過：術後一過性の高ビリルビン血症を認めたが保存的に改善し 術後第9病日に退院した。以後外来にて経過観察を行っているが術後1年現在再発は認めていない。

考 察

FLC は 1956 年に Edmondson¹⁾ が第 1 例目を報告，1980 年に Craig ら²⁾ が “ Fibrolamellar carcinoma of the liver ” として 23 例を，Berman ら³⁾ が “ Hepatocellular carcinoma ; Polygonal cell type with fibrous stroma, an atypical variant with a favorable prognosis ” として 12 例を報告しその臨床病理学的特徴について記載している。病理組織学的には腫瘍細胞は多角形，好酸性の豊富な胞体を有し，しばしば pale body が認められる。このような腫瘍細胞が層状の太い膠原線維束により小巣状に区画されているのが最大の特徴である。病理組織学的に鑑別すべき疾患としては硬化型肝細胞

Fig. 5 Histological finding of the surgical specimen . (a) The tumor tissue consisted of polygonal-shaped cells with eosinophilic cytoplasm and occasionally pale body (arrow heads). (b) Fibrous stroma are arranged around these neoplastic cells in a lamellar fashion.



癌が挙げられるが，これは HCC と同様に肝硬変などの基礎疾患のある中高年男性に多い点，癌細胞が小型で好酸性に乏しい点などから鑑別可能である。

本症は臨床的には肝硬変や慢性肝炎の合併のない若年者に多く，発生頻度に男女差は認められない。欧米では原発性肝癌の 1~2% を占めるが²⁾，東南アジア，アフリカでの発生は少ないなど HCC とは異なった特徴を有する。発症初期にはほとんど無症状であり発見時には 10cm を超える巨大な腫瘤を形成していることも少なくない。特異的な症状はないとされるが，時に腫瘍細胞が高いアロマトラーゼ活性を示し女性化乳房を引き起こすことが有るとの報告⁴⁾⁵⁾も有り，若年者の女性化乳房を見たら本症も念頭に置き検査を行うべきであろう。

Table 1 Reported cases of Fibrolamellar carcinoma in Japan

case	Author	Year	Age/Sex	Size(cm)	Hepatectomy	Elevated tumor marker	HBs/HCV	Cirrhosis	Prognosis
1	Nakano ⁸⁾	1984	10/M	ND	ex-AP		ND/ND	-	A/4m
2	Yoshida ⁹⁾	1986	56/M	4	PR	AFP	+ /ND	-	A/15m
3	Taniura ¹⁰⁾	1987	17/M	8			- /ND	-	D/25m
4	Sasaki ¹¹⁾	1987	12/M	25	AML		- /ND	-	D/5y
5	Inoue ¹²⁾	1988	18/M	17	AP		- /ND	ND	AWD
6	Wada ¹³⁾	1990	10/M	huge	AP		- /ND	-	A/1y
7	Kaneko ¹⁴⁾	1990	36/M	fist size	ML		ND/ND	-	D/9y
8	Haratake ¹⁵⁾	1990	42/M	18	ML		- /ND	-	D/56m
9	Imai ¹⁶⁾	1991	36/F	1.9	PR	AFP	- /ND	+	A/6m
10	Futoe ¹⁷⁾	1991	23/M	15	AP	AFP	- /ND	-	ND
11	Tanaka ¹⁸⁾	1992	57/M	3	AP		- /ND	-	ND
12	Yoshikawa ¹⁹⁾	1993	29/M	10	PR	AFP	- / -	-	ND
13	Hirokawa ²⁰⁾	1993	21/M	14.5	AM	PIVKA-	- / -	-	AWD/7y
14	Okada ²¹⁾	1993	56/M	1.8	C	AFP	- / +	+	AWD/66m
15	Tanaka ²²⁾	1994	19/M	7	ex-ML		- / -	-	A/3y
16	Tanaka ²²⁾	1994	36/F	13	APM	DUPAN-2	- / -	-	A/1y
17	Takahashi ²³⁾	1994	29/M	4	ML + C		+ / -	+	ND
18	Takeuchi ²⁴⁾	1994	52/M	7.5	AP	AFP	+ / -	-	ND
19	Beppu ²⁵⁾	1995	15/M	10.3	ex-ML		- / -	-	A/7m
20	Nemoto ²⁶⁾	1995	30/F	5.5		AFP	- / -	+	D/1d
21	Hamasaki ²⁷⁾	1995	8/F	12	AP		- / -	-	ND
22	Murai ²⁸⁾	1996	15/M	30	APM		ND/ND	-	AWD
23	Hiramatsu ²⁹⁾	1999	25/F	10	AP		- / -	-	AWD
24	Sato ³⁰⁾	1997	15/F	9	M	CA19 9	- / -	-	AWD
25	Okano ³¹⁾	1998	52/M	3.5	ML	AFP	- / -	-	A/48m
26	Yamazaki ³²⁾	1998	17/F	12	ex-ML		- / -	-	A/8m
27	Tomimuro ³³⁾	1999	22/F	6	ML	PIVKA-	- / -	-	AWD
28	Yamaguchi ³⁴⁾	1999	21/M	10.5	ML	PIVKA-	- / -	-	A/7m
29	Horie ³⁵⁾	2000	18/M	10	AP	AFP, PIVKA-	- / -	-	AWD
30	Nojiri ³⁶⁾	2000	27/F	10.5	ex-AP	PIVKA-	- / -	-	A/18m
31	Kishimoto ³⁷⁾	2001	14/F	11	ML	ferritin	- / -	-	A/7m
32	Imura ³⁸⁾	2001	14/M	huge	AML + C		ND/ND	ND	D/11y
33	Magata ³⁹⁾	2001	16/M	12.5	ex-ML	AFP, PIVKA-	- / -	-	ND
34	Takeshita ⁴⁰⁾	2001	64/M	5	L	AFP, PIVKA-	- / -	-	ND
35	Kitabayashi ⁴¹⁾	2001	58/M	10	ML	AFP, PIVKA-	- / -	-	ND
36	Hasegawa ⁴²⁾	2001	48/M	4	ex-AP	AFP	- / -	-	A/3m
37	Okada ⁴³⁾	2001	31/M	14		AFP, PIVKA- , CA19 9	- / -	ND	AWD
38	Kodama ⁴⁴⁾	2001	26/M	ND	ND	PIVKA- , CEA	- / -	ND	ND
39	Fujita ⁴⁵⁾	2002	70/F	3	ND		- / +	+	ND
40	Yamada ⁴⁶⁾	2002	12/F	7	AP	PIVKA- , ferritin	- / -	-	A/6m
41	Yoshimi ⁴⁷⁾	2002	46/M	6	AP	CA125	- / -	-	A/16m
42	Noda ⁴⁸⁾	2002	20/M	14	ex-AP		- / -	-	ND
43	Toyama ⁴⁹⁾	2002	24/F	14	AP		- / -	-	AWD
44	Miyauchi ⁵⁰⁾	2002	14/M	14	AP		ND/ND	ND	AWD/2y
45	Yoshinaga ⁵¹⁾	2002	15/F	13	APM	AFP	- / -	-	A/10m
46	Oshima ⁵²⁾	2002	19/F	4	L		- / -	-	ND
47	Oshima ⁵²⁾	2002	29/M	12	AP	PIVKA-	- / -	-	ND
48	Kojima ⁵³⁾	2003	33/F	3.5	ND		- / -	-	ND
49	Yonehara ⁵⁴⁾	2003	31/F	15	ML		- / -	-	ND
50	Itou ⁵⁵⁾	2003	16/F	10	ex-ML	PIVKA-	ND/ND	ND	ND
51	Karino ⁵⁶⁾	2003	27/M	15	AM		- / -	ND	ND
52	present case	2004	24/F	6.6	AP		- / -	-	A/10m

ND; not determined nor mentioned, AP; right lobectomy, ML; left lobectomy, ex-AP; extended right lobectomy, ex-ML; extended left lobectomy AML; left tri-segmentectomy, APM; right tri-segmentectomy, AM; central bisegmentectomy, C; caudate lobectomy, L; lateral segmentectomy PR; partial resection, A; alive, D; died of the disease, AWD; alive with disease, y; year, m; month, d; day

分子遺伝学的病因はまだ解明されていないが、Wilkinsら⁶⁾はFLCの原発巣および転移病変での染色体変異を調べたところ、原発巣では染色体変異はほとんど無いが転移病巣ではHCCに近い染色体変異が見られたとしている。再発巣がHCCの組織像を呈したり⁷⁾、FLCの中にHCCの組織型への移行像を示したとする報告と考え合わせるとFLCが遺伝子変異を重ねるとHCCに移行する可能性もあるものと思われる。

本邦報告例は我々が医学中央雑誌およびNational Library of Medicine (NLM)を検索した範囲では52例見られたが、肝硬変を有していたり、高齢の患者に発症したものなど、非典型例も含まれていた (Table 1)⁸⁾⁻⁵⁶⁾。本邦における第1例目は1984年に中野ら⁸⁾が10歳の男児に発生した1例を報告しているが、1990年の金子ら¹⁴⁾の報告はまだFLCの概念の成立していない1972年にHCCとして左葉切除を施行され9年後に腹膜播種、肺肝転移、リンパ節転移により死亡した症例の剖検報告になっている。最近では本邦においても報告例が増加しているが以前はFLCと認識されぬまま加療されていた症例も少なくなかったと思われる。

腫瘍マーカーではAFPが陽性を示す症例は10%以下であるとされる²⁾。本邦報告例では48例中15例がAFPの上昇を認めているが、このうち3例はB型あるいはC型肝炎ウィルスのキャリアでFLCとしては非典型例である。PIVKA-IIは52例中13例で上昇していた。その他ビタミンB12結合能、血清neurotensin、 α 1-antitrypsinなどが上昇するとする報告もあるが多くの症例では測定されておらず、どの程度の割合で上昇しているのか不明である。

画像診断上鑑別すべき疾患としては、肝硬変のない若年者に発生すること、中心性癒痕の存在などで酷似しているFocal nodular hyperplasia (FNH)が挙げられる。鑑別上のポイントはFNHには網内系細胞が存在するがFLCには腫瘍細胞のみが存在する点にある。したがって^{99m}Tcフチン酸シンチ、^{99m}TcスズコロイドシンチではFNHは正常肝同様の取り込みを認めることが多いが

FLCは欠損像として描出される。SPIO-enhanced MRIでは網内系を有する正常肝細胞はSPIOを取り込み信号強度が落ちるためにFLCは強くenhanceされるが、FNHでは軽度のenhanceが観察されるのみである⁵⁷⁾。また、FNHの中心性癒痕は血管成分が豊富であるのに対しFLCでは癒痕組織により構成されている。このため造影CTやMRIではFNHの中心性癒痕は造影効果を認めるがFLCでは造影されない点、T2強調MRIでFNHの中心性癒痕は高信号を示すのに対しFLCでは低信号を示す点⁵⁸⁾、FNHではまれな中心性癒痕の石灰化がFLCではしばしば見られる点などが鑑別上重要である^{59,60)}。

FLCに対する治療の第1選択は外科切除である。FLC症例の65%に肝門部、肝十二指腸靱帯などにリンパ節転移が画像上明らかであること⁶¹⁾、リンパ節転移再発のために再手術を余儀無くされている症例が存在すること^{29,62)}から手術は肝切除に加えリンパ節郭清を十分に行う必要がある。Table 1に示した本邦報告例のうち、初回手術時にリンパ節郭清を行ったと記載のあるのは、本症例以外ではcase10, 28, 40, 41, 42の5例のみである。術後のリンパ節再発も少なからず報告されているが、再発病巣の切除により長期生存している症例も有り⁶²⁾、再発例に対しても適応を選び切除術を行うべきである。本症は若年者が多いため切除不能でも病変が肝に限局している場合は肝移植の適応である⁶³⁾。なお、転移再発例に対する有効な化学療法は確立されていない。

従来、FLCはHCCと比べて比較的予後が良い疾患とされてきたが、最近の報告⁶⁴⁾では、FLCとHCCの間に診断時の進行度、切除率、無再発生存率、化学療法への反応性に差は見られなかったとしている。さらに同報告では主に欧米の文献25編をreviewしFLC82例を集計した結果、病変が肝に限局していたのは40例で術後再発無く生存しているのは29例、担癌生存中が12例、原病死が39例であったとしている。本邦における報告52例では、死亡症例は6例、切除不能あるいは再発により担癌生存している症例が11例、予後に関する記載の無いものが18例である。無再発生存の

17例も多くは症例報告がなされた時点までの状態でその後の再発の有無は分からず、本邦における FLC の正確な生存率は不明である。FLC は若年者に生じることを考えると予後は決して楽観してよいものとは言えず、本症例も嚴重な経過観察が必要であると考えている。

文 献

- 1) Edmondson HA : Differential diagnosis of tumors and tumor-like lesions of liver in infancy and childhood. *Am J Dis Child* 91 : 168-186, 1956
- 2) Craig JR, Peters RL, Edmondson HA et al : Fibrolamellar carcinoma of the liver : a tumor of adolescents and young adults with distinctive clinico-pathologic features. *Cancer* 46 : 372-379, 1980
- 3) Berman MM, Libbey NP, Foster JH : Hepatocellular carcinoma. Polygonal cell type with fibrous stroma, an atypical variant with a favorable prognosis. *Cancer* 46 : 1448-1455, 1980
- 4) McCloskey JJ, Germain-Lee EL, Perman JA et al : Gynecomastia as a presenting sign of fibrolamellar carcinoma of the liver. *Pediatrics* 82 : 379-382, 1988
- 5) Agarwal VR, Takayama K, Van Wyk JJ et al : Molecular basis of severe gynecomastia associated with aromatase expression in a fibrolamellar hepatocellular carcinoma. *J Clin Endocrinol Metab* 83 : 1797-1800, 1998
- 6) Wilkens L, Brecht M, Flemming P et al : Cytogenetic aberrations in primary and recurrent fibrolamellar hepatocellular carcinoma detected by comparative genomic hybridization. *Am J Clin Pathol* 114 : 867-874, 2000
- 7) Yamamoto H, Watanabe K, Nagata M et al : Transformation of fibrolamellar carcinoma to common hepatocellular carcinoma in the recurrent lesions of the rectum and the residual liver : a case report. *Jpn J Clin Oncol* 29 : 445-447, 1999
- 8) 中野美和子, 伊川広道, 遠藤昌夫ほか : 肝 Fibrolamellar carcinoma の1例. *日小外会誌* 20 : 188, 1984
- 9) 吉田和彦, 小林 進, 宮本 栄ほか : 肝臓の Fibrolamellar Carcinoma の1例. *日外会誌* 87 : 1485-1490, 1986
- 10) 谷浦博之, 末永直文, 河野仁志ほか : 肝の fibrolamellar carcinoma の1例. *日消外会誌* 20 : 2627-2630, 1987
- 11) 佐々木佳郎, 西 寿治, 西平浩一 : Fibrolamellar carcinoma of the liver の1例. *小児がん* 23 : 397-398, 1987
- 12) 井上卓夫, 寺田 昭, 篠山喜昭ほか : 手術後9年目に遠隔転移を認めた若年者肝細胞癌 (Fibrolamellar carcinoma) の1例. *日消病会誌* 85 : 2340, 1988
- 13) 和田千晶, 金川公夫, 西山章次ほか : 肝の fibrolamellar carcinoma の1例. *日小児放線会誌* 6 : 243-244, 1990
- 14) 金子 聡, 奥平雅彦, 大宮東生ほか : Fibrolamellar carcinoma of the liver の1剖検例. *肝臓* 31 : 145, 1990
- 15) Haratake J, Hrie A, Lee SD et al : Fibrolamellar Carcinoma of the Liver in a Middle-aged Korean Man. *産業医大誌* 12 : 349-354, 1990
- 16) Imai T, Yokoi H, Noguchi T et al : Fibrolamellar carcinoma of the liver A case report. *Gastroenterol Jpn* 26 : 382-389, 1991
- 17) 太枝良夫, 鍋嶋誠也, 神野弥生ほか : Fibrolamellar Hepatocellular Carcinoma の1例. *日消病会誌* 88 : 558, 1991
- 18) 田中貞夫 : Fibrolamellar Carcinoma of the Liver. *病院病理* 10 : 110, 1992
- 19) 吉川一実, 鎌倉幸孝, 伊坪哲也ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の一例. *日臨細胞会誌* 32 : 351, 1993
- 20) 広川雅之, 竜 崇正, 渡辺一男ほか : 肝の Fibrolamellar Carcinoma の一切除例. *肝臓* 34 : 29-35, 1993
- 21) Okada K, Kim YI, Nakashima K et al : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma coexistent with a hepatocellular carcinoma of common type : report of a case. *Surg Today* 23 : 626-631, 1993
- 22) Tanaka J, Baba N, Arii S et al : Typical fibrolamellar hepatocellular carcinoma in Japanese patients : report of two cases. *Surg Today* 24 : 459-463, 1994
- 23) 高橋洋平 : 黄疸で発症した肝 fibrolamellar carcinoma の1例. *病院病理* 11 : 162, 1994
- 24) 竹内 薫, 石倉 浩, 水戸康文ほか : B型肝炎ウイルスキャリアに発症した AFP 産生性の Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の1例. *癌の臨* 40 : 429-433, 1994
- 25) 別府 透, 久保田竜生, 片渕 茂ほか : Fibrolamellar carcinoma の1切除例 術前画像診断を中心に. *肝臓* 36 : 601-607, 1995
- 26) 根本 遵, 品川 孝, 飯野康夫ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の1例. *癌の臨* 41 : 453-457, 1995
- 27) 浜崎 豊, 平岩久幸 : 肝細胞癌, fibrolamellar carcinoma と考えられた8歳例. *小児がん* 32 : 494, 1995
- 28) 村井秀昭, 里見 昭, 川瀬弘一ほか : 部分的に Fi-

- fibrolamellar Carcinoma の所見を呈した小児肝腫瘍の 1 例 . 小児がん 33 : 421, 1996
- 29) Hiramatsu K, Okamoto K, Uesaka K et al : Surgical management for lymph node recurrence of resected fibrolamellar hepatocellular carcinoma : a case report. Hepatogastroenterology 46 : 1160 1163, 1999
- 30) Sato S, Masuda T, Oikawa H et al : Bile canaliculi-like lumina in fibrolamellar carcinoma of the liver : a light-and electron-microscopic study and three-dimensional examination of serial sections. Pathol Int 47 : 763 768, 1997
- 31) Okano A, Hajiro K, Takakuwa H et al : Fibrolamellar carcinoma of the liver with a mixture of ordinary hepatocellular carcinoma : a case report. Am J Gastroenterol 93 : 1144 1145, 1998
- 32) 山崎裕哉, 甲田英一, 金井歳雄ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の 1 例 臨放線 43 : 523 526, 1998
- 33) 冨室哲也, 香山仁志, 船井貞往ほか : Fibrolamellar carcinoma の 1 切除例 . 日外科系連会誌 24 : 797 801, 1999
- 34) Yamaguchi R, Tajika T, Kanda H et al : Fibrolamellar carcinoma of the liver. Hepatogastroenterology 46 : 1706 1709, 1999
- 35) 堀江 靖, 加藤雅子 : 若年者に生じた悪性肝腫瘍の 2 例 : Fibrolamellar Hepatocellular Carcinoma と Epithelioid Hemangioendothelioma . 岡山外科病理誌 37 : 27 34, 2000
- 36) 野尻卓也, 三森教雄, 吉田達也ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の 1 例 . 日消外会誌 33 : 1905 1909, 2000
- 37) 岸本宏志, 小川恵弘, 福澤龍二ほか : 小児肝細胞癌 (Fibrolamellar carcinoma) の一例 . 小児がん 38 : 99, 2001
- 38) 井村千明, 八木 昭, 佐藤 顕ほか : 11 年の経過を経た fibrolamellar type 肝細胞癌の一例 . 東三医会誌 23 : 59, 2001.
- 39) 眞方紳一郎, 北原賢二, 渡辺恵子ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の 1 切除例 . 肝臓 42 : 414 419, 2001
- 40) 竹下 篤, 成山 硬, 黒川晃夫ほか : 高度のリンパ球浸潤を伴った fibrolamellar carcinoma の 1 例 . 日病理会誌 90 : 289, 2001
- 41) 北林一男, 横井美樹, 長谷川泰介ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の 1 例 . 日消外会誌 34 : 1169, 2001
- 42) 長谷川潤, 武者信行, 小向慎太郎ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の 1 切除例 . 日消外会誌 34 : 1169, 2001
- 43) 岡田浩介, 平山 剛, 鴨志田敏郎ほか : 転移をきたした Fibrolamellar carcinoma の 1 例 . 日内会関東会 492 回演題要 . 28, 2001
- 44) 児玉隆之, 徳田由紀子, 渡邊嘉之ほか : 肝 Fibrolamellar carcinoma の 1 例 . 日本医会誌 61 : 254, 2001
- 45) 藤田 眞, 堀之内隆, 井上悦男ほか : MRI T2 強調画像で低信号を示し, 豊富な細胞質内封入体の特徴とした Fibrolamellar HCC の 1 例 ファントム実験によるフィブリノーゲンの T2 短縮作用の検討を加えて . 日独医報 46 : 343 344, 2002
- 46) 山田弘人, 大野耕一, 広橋一裕ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の 1 例 . 日小児外会誌 38 : 566, 2002
- 47) Yoshimi F, Asato Y, Amemiya R et al : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma in a Japanese man : report of a case. Surg Today 32 : 174 179, 2002
- 48) 野田芳範, 佐々木亮孝, 新田浩幸ほか : 肝右葉に原発した巨大な fibrolamellar carcinoma の 1 切除例 . 日臨外会誌 63 : 550, 2002
- 49) 遠山洋一, 吉田清哉, 中里雄一ほか : 肝 Fibrolamellar carcinoma 術後, 横隔膜再発の 1 手術例 . 日消外会誌 35 : 1333, 2002
- 50) 宮内 潤 : 肝細胞癌 (Fibrolamellar carcinoma) と肝内胆管癌混合型の 1 例 . 小児がん 39 : 84, 2002
- 51) 吉永有信, 岡住慎一, 高山亘ほか : 15 歳女児に発症した Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の 1 例 . 消画像 4 : 97 103, 2002
- 52) 尾島英知, 坂元亨宇, 長谷部孝裕ほか : Fibrolamellar carcinoma 2 症例の検討 . 日病理会誌 91 : 162, 2002
- 53) 小嶋基寛, 太田喜樹, 鈴木孝夫ほか : 硬化型の肝細胞癌との鑑別が困難であった Fibrolamellar carcinoma の 1 例 . 日病理会誌 92 : 340, 2003
- 54) 米原修治 : 肝腫瘍 (Fibrolamellar hepatocellular carcinoma) . 広島医 56 : 661, 2003
- 55) 伊藤眞史, 大坪毅人, 福田 晃ほか : Fibrolamellar carcinoma の 1 切除例 . 日外科系連会誌 28 : 637, 2003
- 56) 狩野忠滋, 橋本 修, 三木浩栄ほか : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma の一例 . 日外会誌 104 : 561, 2003
- 57) Poeckler-Schoeniger C, Koepke J, Gueckel F et al : MRI with superparamagnetic iron oxide : efficacy in the detection and characterization of focal hepatic lesions. Magn Reson Imaging 17 : 383 392, 1999
- 58) Mattison GR, Glazer GM, Quint LE et al : MR imaging of hepatic focal nodular hyperplasia : characterization and distinction from primary malignant hepatic tumors. AJR Am J Roentgenol 148 : 711 715, 1987

- 59) Soyer P, Roche A, Levesque M et al : CT of fibrolamellar hepatocellular carcinoma. *J Comput Assist Tomogr* 15 : 533-538, 1991
- 60) Caseiro-Alves F, Zins M, Mahfouz AE et al : Calcification in focal nodular hyperplasia : a new problem for differentiation from fibrolamellar hepatocellular carcinoma. *Radiology* 198 : 889-892, 1996
- 61) Ichikawa T, Federle MP, Grazioli L et al : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma : imaging and pathologic findings in 31 recent cases. *Radiology* 213 : 352-361, 1999
- 62) Yamamoto H, Watanabe K, Takayama W et al : Surgical management for lymph node recurrence of resected fibrolamellar carcinoma of the liver : a case report. *Jpn J Clin Oncol* 29 : 445-447, 1999
- 63) Pinna AD, Iwatsuki S, Lee RG et al : Treatment of fibrolamellar hepatoma with subtotal hepatectomy or transplantation. *Hepatology* 26 : 877-883, 1997
- 64) Katzenstein HM, Krailo MD, Malogolowkin MH et al : Fibrolamellar hepatocellular carcinoma in children and adolescents. *Cancer* 97 : 2006-2012, 2003

A Resected Case of Fibrolamellar Carcinoma in a 24 Years Old Woman :
A Case Report and Review of Japanese Cases

Hiroshi Yokomizo, Kenji Yamaguchi, Michio Hifumi¹⁾, Kouji Hayashi, Toshihiko Hirata,
Hirosugu Terakura, Takaaki Yamane, Tetsu Kawaguchi¹⁾, Seiji Fukuda²⁾ and Hidenobu Matsukane
Department of Surgery, Japanese Red Cross Kumamoto Hospital
Department of Gastroenterology, Japanese Red Cross Kumamoto Hospital¹⁾
Department of Pathology, Japanese Red Cross Kumamoto Hospital²⁾

We report a case of hepatic fibrolamellar carcinoma (FLC), a case that is rare in Japan. A 24-years-old woman was referred for further examination of a 6-cm tumor in the right lobe of the liver found in mass screening ultrasonography. At the arterial phase of contrast-enhanced CT, the tumor was well enhanced except for a central scar. Superparamagnetic iron oxide (SPIO) enhanced MRI showed a high-intensity tumor suggesting FLC. Right hepatic lobectomy was done. Histological findings of the surgical specimen showing eosinophilic large neoplastic cells surrounded by fibrous stroma arranged lamellarly confirmed the diagnosis of FLC. FLC is a distinct clinicopathological variant of Hepatocellular carcinoma, which occurs in non-cirrhotic liver of young patients. Hepatectomy for surgical treatment of FLC should be accompanied with regional lymphadenectomy, because FLC frequently associates with lymph node metastasis. We also review 52 FLC cases reported in Japan.

Key words : fibrolamellar carcinoma, hepatocellular carcinoma

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 37 : 1645-1652, 2004]

Reprint requests : Hiroshi Yokomizo Department of Surgery, Japanese Red Cross Kumamoto Hospital
2-1-1 Nagamine Minami, Kumamoto 862-8520 JAPAN

Accepted : April 28, 2004