

症例報告

硬化性変化と増大傾向を呈し切除に至った肝血管腫の1例

小堀 篤也^{1, 2}, 依藤 正信¹, 小林龍ノ介¹, 篠原 翔一¹, 井上 康浩¹, 井上 賢之¹,
佐藤 寛丈¹, 岡田 真樹¹, 安田 是和¹, 藤田 晃史³, 仁木 利郎⁴

¹芳賀赤十字病院 外科 〒321-4308 栃木県真岡市中郷271

²自治医科大学消化器一般移植外科 〒329-0498 栃木県下野市薬師寺3311-1

³芳賀赤十字病院 放射線科 〒321-4308 栃木県真岡市中郷271

⁴自治医科大学 病理学講座 〒329-0498 栃木県下野市薬師寺3311-1

要 約

症例は86歳女性。X-12年に子宮体癌術前精査のCTで肝S2に3 cm大の血管腫を指摘された。以降画像フォローがなされ、徐々に増大傾向を認めていた。X-1年に腫瘍は長径17cmに至り、心窩部圧迫感も出現した。画像上腫瘍中心部に硬化性変化を疑う所見が出現し、門脈臍部や中肝静脈の圧排も認めたことから、X年に左肝切除を施行した。病理所見は間葉系細胞の豊富な海綿状血管腫様の成分と硬化性血管腫様の成分の混在を認めた。肝硬化性血管腫は稀な病態で報告例の多くで肝切除が施行されている。経過観察で硬化性変化と増大を観察し得た報告は極めて稀である。文献的考察を加えて報告する。

(キーワード：肝硬化性血管腫，肝海綿状血管腫)

諸言

肝海綿状血管腫は、肝原発の良性腫瘍の80%以上を占めるとされる^{1), 2)}。特徴的な画像所見を示し、比較的容易に診断可能である。一方肝硬化性血管腫は稀な病態で、血管腫が部分的あるいは全体に線維化や硝子化をきたしたものとされ¹⁾⁻⁵⁾、多様な画像所見から悪性腫瘍との鑑別困難例があり、外科的切除の選択肢となる。今回我々は、当初は典型的な海綿状血管腫が長期フォローで徐々に増大し、腫瘍内部が硬化性変化を来し肝切除を施行した1例を経験した。画像所見と考察を加え報告する。

症例

患者：86歳，女性

主訴：心窩部圧迫感

既往歴：子宮体癌（X-12年，子宮全摘術），右下葉肺癌（X-8年，鏡視下切除術），高血圧，逆流性食道炎

現病歴：X-12年に子宮体癌術前精査のCTで肝S2に3 cm大の血管腫を指摘された。以降当院内科で画像フォローがなされ、緩徐な増大傾向は認めていたが、自覚症状はなく経過観察となっていた。X-1年の造影CTで長径17cmまでの増大と腫瘍中心部に硬化性変化を疑う所見が出現し、悪性腫瘍も否定しきれなかった。心窩部圧迫感も伴い、X年7月に当科紹介となった。

入院時現症：身長151.2cm，体重38.3kg，心窩部から左季

肋下に小児頭大の腫瘤を触知。

当科初診時検査所見：血小板12.6万と低値，CA19-9 43.1と軽度高値の他特記すべき異常所見なし。

画像所見：X-8年の造影CTでは肝S2に早期相で辺縁，後期相で内部に広がる造影効果を伴う長径6 cmの腫瘍を認めた。MRIではT1低信号（図1b），T2高信号（図1c）で典型的な海綿状血管腫の像であった。X-6年の造影CTでは腫瘍は増大し，中心に造影されない低吸収域が出現していた（図1e，矢印）が，大部分は海綿状血管腫の像であった。X年の造影CTではさらなる増大により腫瘍は左肝を占め，中心の低吸収域の拡大を認めた（図1f，g，矢印）。腫瘍辺縁では早期相から後期相にかけて求心性に広がる造影効果を認め，こちらは海綿状血管腫の像と考えられた。海綿状血管腫様の領域と正常肝の境界は不明瞭で，腫瘍右側は門脈臍部や中肝静脈を圧排していた。左肝動脈は怒張し腫瘍に流入していた（図1g，*）。MRIではT2高信号の中に中等度信号，低信号の混在（図1i，矢頭）を認め，硬化性変化が疑われた。

画像所見では転移性肝腫瘍や肝内胆管癌と鑑別を要したが，子宮体癌術後12年，肺癌術後8年で転移性腫瘍は否定的，動脈血流著明であることから肝内胆管癌は考えにくく，海綿状血管腫の硬化性変化と判断した。増大傾向で心窩部圧迫感も出現してきたことから，左肝切除術＋胆嚢摘出術を施行した。肝左葉中心に緊満した小児頭大の腫瘤を

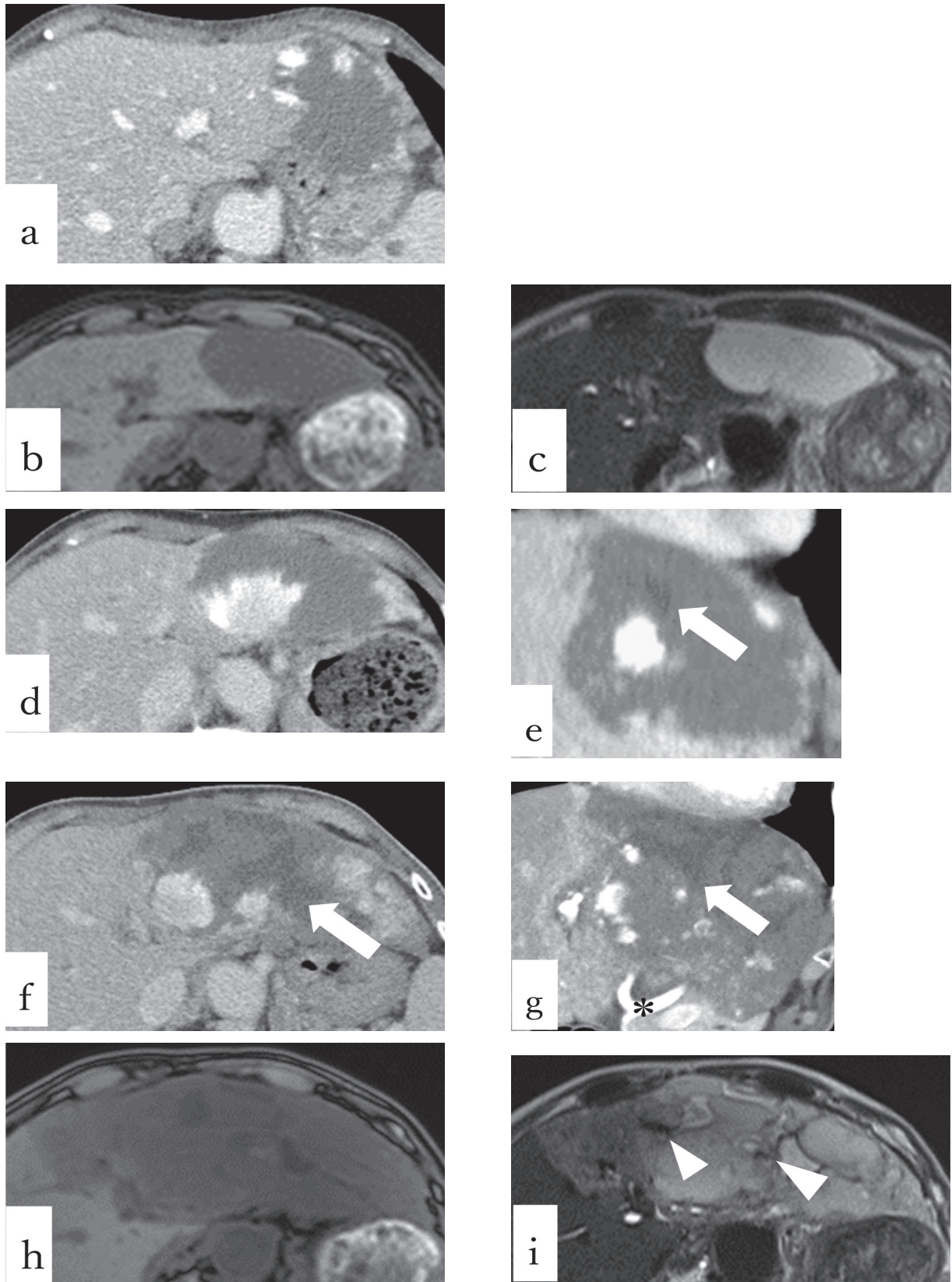


図 1

図 1 a) X-8年造影CT：早期相で辺縁，後期相で内部に広がる造影効果を伴う長径6 cmの腫瘍を認めた。

図 1 b, c) X-8年MRI：T1 (b) 低信号，T2 (c) 高信号で典型的な海綿状血管腫の像であった。

図 1 d, e) X-6年造影CT：腫瘍増大に加え新たに中心付近に造影されない低吸収域の出現（矢印）を認めた。

図 1 f, g) X年造影CT：腫瘍長径は17cmに至り中心付近の低吸収域は拡大していた（矢印）。腫瘍辺縁では早期相から後期相にかけて求心性に広がる造影効果を認めた。門脈臍部，中肝静脈は腫瘍に圧排され，右側に偏位していた。左肝動脈（*）は怒張し，腫瘍へ流入していた。

図 1 h, i) X年MRI：T2 (i) 高信号の中に中等度信号，低信号（矢頭）が混在していた。

認めた。左肝動脈を確保しクランプすると腫瘍は著明に縮小した。左肝動脈を先行処理し、その後左門脈および左肝管を切離した。中肝静脈は末梢で処理し、根部を温存したうえで左肝切除とした。手術時間は4時間11分、術中出血量は380mlであった。

切除標本肉眼所見（図2a）：肉眼的には出血調の領域と白色調の領域の混在を認めた。造影CTの中心部低吸収域と切除標本の断面白色調領域は一致していた。

病理組織学的所見（図2b, c, d）：「白色壊死・ヒアリ

ン化した領域」（矢印）, 「線維性の成分が目立つ拡張した血管腔を有する領域」（矢頭）, 「間葉系細胞の混じる拡張した血管腔を有する領域」（b, c. 左側, d=拡大像）, 「辺縁の肝組織」が混在するような像を認めた。小型の血管が肝細胞を取り囲むように増生しており、病変の増大を示唆する所見であった。

以上画像所見および病理組織学的所見から、肝海綿状血管腫から変性し、硬化性変化を伴った肝血管腫と診断した。術後の経過は良好であり、腹部症状も消失し、外来で

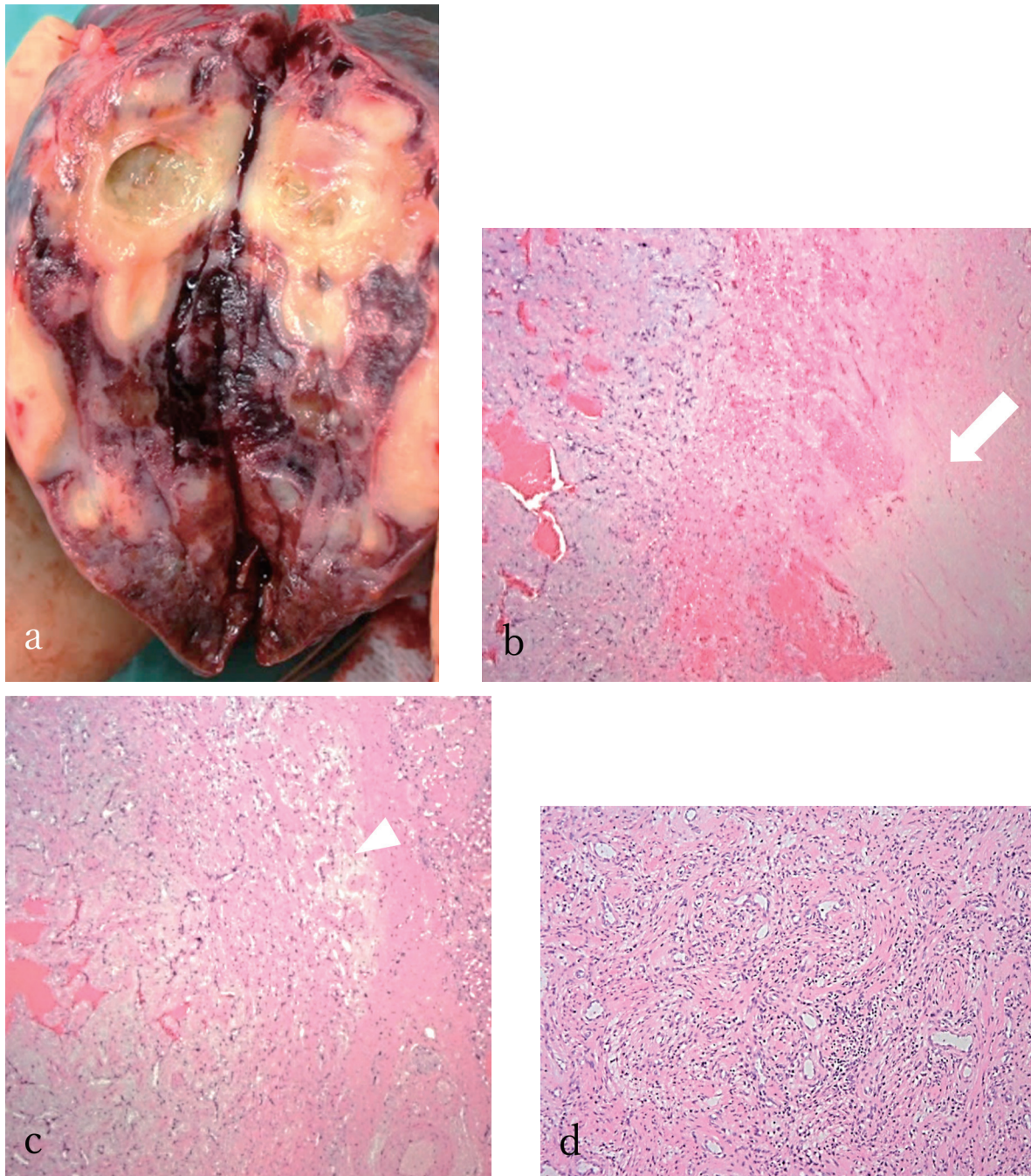


図2

図2a) 検体画像：出血調の領域と白色調の領域が混在していた。

図2b, c, d) 病理画像：「白色壊死・ヒアリ化した領域」（矢印）, 「線維性の成分が目立つ拡張した血管腔を有する領域」（矢頭）, 「間葉系細胞の混じる拡張した血管腔を有する領域」（b, c. 左側, 拡大像=d）, 「辺縁の肝組織」が混在するような像を認めた。

経過観察中である。

考察

肝硬化性血管腫は、腫瘍全体が線維組織に置換されたSclerosed hemangiomaと部分的に硬化に陥ったSclerosing hemangiomaとに分類され、本症例はSclerosing hemangiomaとなる。医学中央雑誌およびPubMedで「肝硬化性血管腫」「Hepatic sclerosing hemangioma」「Hepatic sclerosed hemangioma」で会議録を除いて検索すると58例の報告があり、53例は切除、4例は生検で診断され経過観察、1例は詳細不明であった。切除例で増大傾向を観察し得た症例は本症例を含め5例で（表）、このうち海綿状血管腫からの硬化性変化を長期経過で確認し得た症例は本症例を含めわずか2例であった。肝血管腫の増大に関しては、妊娠や経口避妊薬、ホルモン治療の関与などが報告されている⁶⁾が、硬化性血管腫が増大に至る機序に関して言及された報告はない。海綿状血管腫の典型的な画像所見として、造影CTでの辺縁部早期濃染および中心部への造影効果の拡大やMRI T2強調像での高信号が挙げられる¹⁾。一方硬化性血管腫は、典型的な画像所見に乏しく、肝内胆管癌や転移性肝癌、硬化型肝細胞癌など線維成分の多い悪性腫瘍との鑑別がつきにくい。本症例では12年にわたって画像フォローが行われており、当初のMRIでは典型的な海綿状血管腫の像であったが、X年には肝左葉を占める増大と硬化性変化を疑う所見を認めた。腫瘍中央部で硬化性変化を示し辺縁部の海綿状血管腫の成分が動脈血流優位で膨張していったことが特徴的であった。病理所見では間葉系細胞の豊富な領域とヒアリン化の目立つ領域が混在しており、間葉系細胞の目立つ領域で小型の血管が肝細胞を取り囲むように増生していた。この“間葉系細胞”が硬化性変化の中で腫瘍増大に関与したのではないかと推察された。

画像的に肝海綿状血管腫としてフォローされていた症例でも、増大や画像所見の変化等を機に切除し胆管癌や未分化肉腫であったことが判明したという報告もある^{7), 8)}。腫瘍生検により肝硬化性血管腫と診断され切除を回避できた報告²⁾もあるが、生検での診断には限界があり、生検が行われたものの最終的に切除に至っていた報告例が今回検索し得た58例中3例あった。本症例では腫瘍血流が豊富で出血が懸念されたため、生検は行わなかった。腫瘍増大による心窩部圧迫感と、画像上腫瘍辺縁部で肝静脈や門脈の圧排所見まで出現したため、左肝切除を行った。腫瘍内血流が動脈有意であったことから、左肝動脈を先行処理して

腫瘍縮小が得られ、安全に手術が可能であった。

肝海綿状血管腫の中には増大例が存在する¹⁾。特に3 cm超の肝血管腫では症状の有無に関わらず定期的に観察し、急速な増大傾向や内部の性状変化をみた場合は、切除も検討すべきと思われた。

利益相反の開示：

著者全員は本論文の内容について、報告すべき利益相反を有しません。

文献：

- 1) 日本医学放射線学会および日本放射線科専門医会・医会共同編集. 肝海綿状血管腫の画像診断ガイドライン. 2007年版
- 2) 宮木大輔, 相方 浩, 脇 浩司, 他. 12年の経過で退行性変化の経過を追えた肝硬化性血管腫の1例. 日本消化器病学会雑誌 2011; **108**: 954-961
- 3) 濱津隆之, 黒田陽介, 舟橋 玲, 他. 転移性肝癌と鑑別が困難であった肝硬化性血管腫の1例. 日本臨床外科学会雑誌 2006; **67**: 856-860
- 4) 碓井健文, 塩澤俊一, 金 達浩, 他. 転移性肝癌との鑑別が困難であった肝硬化性血管腫の1例. 日本外科系連合会誌 2010; **35**: 89-93
- 5) 羽田 裕, 高木慎太郎, 相坂康之, 他. 鑑別に苦慮した多発性肝硬化性血管腫の1例. 日本消化器病学会雑誌 2018; **115**: 465-493
- 6) J. Belghiti, V. Vilgrain, V. Paradis. Benign Liver Lesions. *Blumgart's surgery of the liver, biliary tract, and pancreas*. Philadelphia, Saunders Elsevier, 2007, 1131-1135
- 7) 零 正人, 鹿野敏雄, 丸山浩高, 他. 破裂により緊急手術を要した成人肝未分化肉腫（径30cm）の1例. 日本臨床外科学会雑誌 2018; **79**: 2481-2489
- 8) 山口勝利, 長尾泰孝, 山根慧己, 他. 肝血管腫として16ヵ月経過観察した細胆管細胞癌の1例. 日本消化器病学会雑誌 2018; **115**: 1078-1086
- 9) Li Xu, Xu Yang, Shan Ke, et al. Resection as first-line therapy for large hepatic sclerosing hemangioma: a case report. *OncoTargets and Therapy* 2019; **12**: 6839-6842

表) 増大傾向を示した肝硬化性血管腫

報告者	症例	フォロー期間	術前診断	生検	治療
濱津 ³⁾	59歳 男性	1 か月	転移性肝癌	無	肝部分切除
碓井 ⁴⁾	57歳 女性	4 か月	転移性肝癌, 肝内胆管癌など	無	左肝切除
羽田 ⁵⁾	83歳 女性	6 ヶ月	硬化性血管腫, 肝内胆管癌など	有	後区域切除 + 部分切除
Li Xu ⁹⁾	65歳 男性	16年	海綿状血管腫	有	ラジオ波焼灼→右肝切除
自験例	86歳 女性	12年	硬化性血管腫	無	左肝切除

A case of hepatic hemangioma with sclerotic changes and enlargement

Kobori Atsuya^{1,2}, Hyodo Masanobu¹, Kobayashi Ryunosuke¹, Shinohara Shoichi¹, Inoue Yasuhiro¹, Inoue Yoshiyuki¹, Sato Hirotake¹, Okada Masaki¹, Yasuda Yoshikazu¹, Fujita Akifumi³, Niki Toshiro⁴

¹ Haga Red Cross Hospital, Department of Surgery, 271 Nakago, Mooka, Tochigi 321-4308, Japan

² Jichi Medical University, Department of Surgery, 3311-1 Yakushiji, Shimotsuke, Tochigi 329-0498, Japan

³ Haga Red Cross Hospital, Department of Radiology, 271 Nakago, Mooka, Tochigi 321-4308, Japan

⁴ Jichi Medical University, Department of Pathology, 3311-1 Yakushiji, Shimotsuke, Tochigi 329-0498, Japan

Abstract

In this case of an 86-year-old woman, in year X-12, a 3-cm hemangioma was found in segment 2 of the liver during preoperative computed tomography (CT) screening for uterine cancer. The tumor was followed-up by CT or abdominal ultrasonography. In year X-1, the length of the tumor had increased to 17 cm, and the patient complained of epigastric pressure. Because findings suggested sclerotic changes in the tumor center and included hepatic and portal vein compression, a left hepatectomy was performed. Pathological findings showed a cavernous hemangioma-like component with abundant mesenchymal cells, combined with a sclerosing hemangioma-like component with prominent hyalinization. Although there have been many reports of hepatic sclerosing hemangioma resection, cases with long-term follow-up observation and imaging showing size and sclerotic changes are rare. This case is reported along with a review of the literature.

(Key words: hepatic sclerosing hemangioma, hepatic sclerosed hemangioma, hepatic cavernous hemangioma)