

症例報告

尾状葉原発肝血管筋脂肪腫の1例

河岡 徹, 深田武久, 桑原太一, 松隈 聰, 金子 唯, 原田俊夫, 平木桜夫,
福田進太郎, 播磨陽平¹⁾, 浦山直樹¹⁾, 久野興子¹⁾, 松崎祐子¹⁾, 佐貫和俊¹⁾

宇部興産中央病院外科 宇部市西岐波750番地 (〒755-0151)
宇部興産中央病院消化器科¹⁾ 宇部市西岐波750番地 (〒755-0151)

Key words : 肝血管筋脂肪腫, 尾状葉, 腹腔鏡下肝切除術

和文抄録

症例は41歳女性。検診の腹部超音波検査で尾状葉突起部に突出型、35mm大の肝腫瘤を指摘された。HBs抗原ならびにHCV抗体は陰性であった。経口避妊薬などの内服歴はなかった。腹部CT, MRI, 超音波検査で腫瘤全体は早期で強く造影され、後期ではwash outされた。MRIではT1強調で低信号, T2強調で一部やや高信号であった。血管造影でも腫瘍は強く濃染された。PET-CTでは腫瘍に¹⁸F-FDGの集積を認めなかった。AFPならびにPIVKA-IIは基準値内であった。肝細胞癌など悪性腫瘍の可能性も完全には否定出来ず、増大傾向を認めた為、診断かつ治療目的で、腹腔鏡補助下肝尾状葉突起部部分切除術を施行した。最終診断は肝血管筋脂肪腫(肝AML)、筋腫型であった。術後の経過は良好で、第9病日に軽快退院した。肝AMLの中でも腫瘍内に脂肪成分が殆どない筋腫型の場合、他の疾患との鑑別は困難である。また腫瘍が小さい場合は細小肝癌との区別に苦慮する場合もある。そのため、診断治療目的に腹腔鏡(補助)下肝切除術を行うことは有用と思われる。本症例は腹腔鏡下手術が手技的に難しい尾状葉原発であったが、突起部からの突出型であったため、腹腔鏡補助下で手術を行い、確定診断が得られた。肝尾状葉原発腫瘍であっても、症例を選択すれば、腹腔鏡(補助)下肝部分切除術は可能である。

平成24年10月7日受理

はじめに

腹腔鏡下肝部分切除術と外側区域切除術は2010年から保険収載され、一部の施設では定型化された術式になりつつある。当初、腹腔鏡下肝部分切除術の適応は、S2からS6までに限定される場合が多かったが¹⁾、最近ではS8・S7などにも適応拡大される傾向にある²⁾。しかし尾状葉に対する腹腔鏡下肝切除術は今までほとんど報告されていない^{3, 4)}。

今回、我々は尾状葉突起部原発の肝腫瘍に対して、確定診断かつ治療目的で腹腔鏡補助下肝部分切除術を施行することにより肝血管筋脂肪腫(以下、肝AML)、筋腫型との診断を得ることが出来たため、文献的考察を加えてこれを報告する。

症 例

患 者 : 41歳, 女性。

症 状 : 特記すべきことなし。

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 : 毎年検診で腹部超音波検査を受けていたが、平成23年の検査で初めて肝腫瘤を指摘され、精査目的で当院を受診した。

現 症 : 身長164cm, 体重56.5kg. BMI 20.9. 血圧91/47mmHg, 脈拍数62/分. 体温36.3℃. 貧血, 黄疸を認めず。腹部は平坦, 軟。Virchowリンパ節を触知せず。

血液検査所見：肝機能も含め、血液生化学検査は全て正常範囲内であった。HBs抗原ならびにHCV抗体は陰性であった。ICG15は4.3%であった。腫瘍マーカーはCA19-9が359U/mlと高値であったが、AFP, PIVKA-II, CEA, CA125は基準値内であった。**画像所見：**検診で行われた腹部超音波検査で肝尾状葉突起部から肝外へ突出した径34×21mm大、低エコーの腫瘍を認めた。経過観察されていたが、半年後に再度行われた腹部超音波検査では、腫瘍径は39×29mm大に増大していた。カラードプラーで腫瘍内に血流シグナルを認めた。造影すると動脈相で腫瘍は濃染し、Kupffer相では陰影欠損像として確認された。腹部dynamic CTでは動脈相で全体がやや不均一に造影され、平衡相でwash outされた(図1)。腹部MRIではT1強調で低信号、T2強調で軽度高信号であり、一部にやや強い高信号の部分を確認した(図2 a, b)。動脈相で腫瘍は良好に造影され、肝細胞造影相では陰影欠損像として認められた(図2 c)。PET-CT検査では腫瘍内に¹⁸F-FDGの集積を認めなかった(SUVmax 1.90)。腹部血管造影では腫瘍は強く濃染されたが、一部に染まりが弱い部分を認めた(図2 d)。CTA(肝動脈造影下CT)やCTAP(経動脈的門脈造影下CT)を含めた上記いずれの検査でも、主病変以外に悪性腫瘍と思われる病変は認めなかった。なお上・下部消化管内視鏡検査を行ったが、異常を認めなかった。

以上より、肝腺腫・早期肝細胞癌・限局性結節性過形成(FNH)・肝血管筋脂肪腫などを疑ったものの確定診断には至らなかった。血流が豊富な腫瘍であり、肝外突出型であること、肝細胞癌を完全には否定できないことから、出血や腫瘍撒布のリスクを考慮して針生検は施行せず、診断・治療を兼ねて腹腔鏡下(補助下)肝部分切除術を行うこととした。**手術所見：**臍部に12mmカメラポート、心窩部に12mmポートを留置、左右肋弓下ならびに右側腹部に2本の5mmポートを留置(図3)、計6ポート下に気腹を行い、腹腔内を観察した。肝臓実質は正常肝(肝硬変ならびに慢性肝炎なし)であり、腹腔内に腹水貯留は認めなかった。肝尾状葉突起部から肝外に突出したピンポン玉大、表面は円滑で肝実質に覆われた柔らかい腫瘍を認めた(図4 a)。表面には細血管が増生していた。

まず下大静脈と腫瘍を含めた尾状葉との間を剥離

した。下大静脈の10時ならびに12時方向から尾状葉に向かう6本の短肝静脈を認めた。それぞれ5mmクリップをかけた後、切離した。通常開腹手術では術者の視野は患者腹側からになる為、短肝静脈の処理には肝臓自体が視野の障害となる。そのため助手

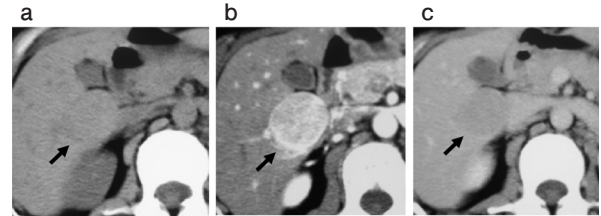


図1 腹部dynamic CT所見

肝S1に最大径3.5cmの肝腫瘍を認める。動脈相で全体がやや不均一に強く造影され、平衡相でwash outされた。

a: 造影前, b: 動脈相, c: 平衡相 (→: 腫瘍)

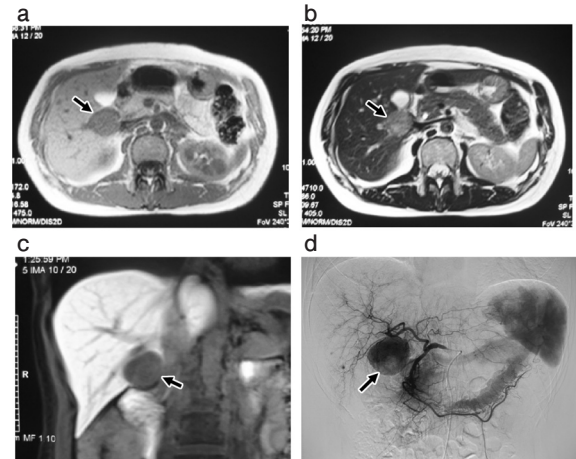


図2 腹部MRI所見と血管造影所見

a: 腹部MRIのT1強調で腫瘍は低信号であった。

b: T2強調で軽度高信号であり、一部にやや強い高信号の部分を確認した。

c: 肝細胞造影相では陰影欠損像として認められた。

d: 腹部血管造影では腫瘍は強く濃染されたが、一部に染まりが弱い部分を認めた。

(→: 腫瘍)

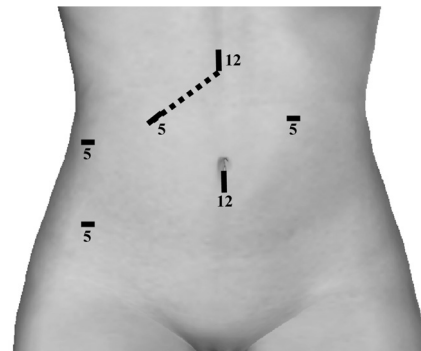


図3 トロッカー挿入部位

臍部・心窩部に12mmポート、左右肋弓下ならびに右側腹部2カ所に5mmポートを留置した。後に心窩部と右季肋部のポート間(点線)を開腹した。

は肝臓の把持授動に徹する必要があるが、助手自身は術野を十分に見ることが出来ないが、これにより視野が展開される。これに対し腹腔鏡下手術では肝背側の視野が良好であり、術者と助手が同じ術野を共有しながら手術をすることが出来る。また拡大視効果により細い短肝静脈の処理も容易となり、短肝静

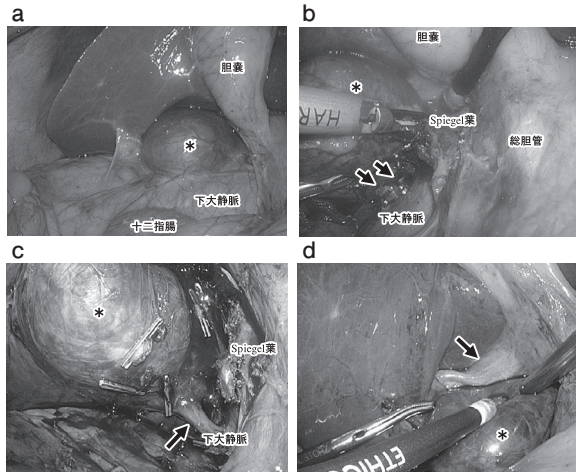


図4 術中所見

- a: 肝尾状葉突起部から肝外に突出したピンポン玉大、表面は円滑で肝実質に覆われた柔らかい腫瘍を認めた。
(*: 腫瘍)
- b: 尾状葉突起部とSpiegel葉との境界を超音波凝固切開装置で切離した。(→: 短肝静脈断端)
- c: 短肝静脈をそれぞれクリップで処理後、切離した。(→: 短肝静脈)
- d: 腫瘍はグリソン右枝と尾状葉下大静脈部のみに固定された状態となった。(→: グリソン右枝)

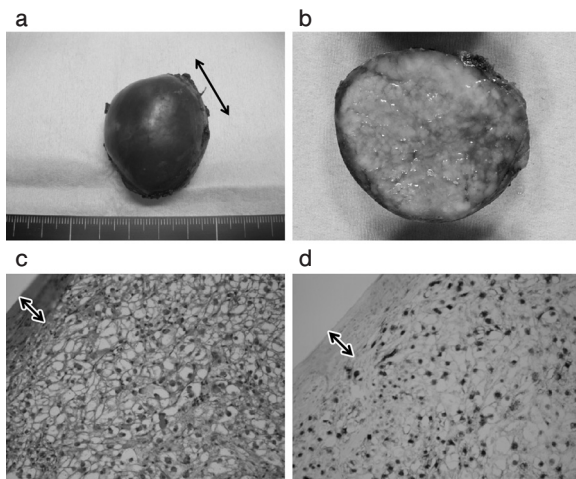


図5 摘出標本と病理組織学的所見

- a: 切除標本 (↔: Spiegel葉との切離面)
- b: 切除標本剖面
- c: 淡明あるいは好酸性の豊かな細胞質と大型核を有する細胞が認められた (HE: ×200).
(↔: 正常肝)
- d: HMB-45陽性であった (HMB-45: ×200).
(↔: 正常肝)

脈損傷のリスクを減らす意味でも効果的であった。本症例では、体位変換することもなく、仰臥位のままで終始良好な視野を得ることが出来た。

短肝静脈処理後、肝Spiegel葉と突起部との境界を超音波凝固切開装置 (Harmonic ACE™, ジョンソン・エンド・ジョンソン社) で切離することで腫瘍の背側・側方 (Spiegel葉側) は遊離され、頭側のグリソン右枝ならびに尾状葉下大静脈部のみでわずかに繋がっている状態となった (図4d)。しかし腫瘍自体による視野展開不良のため、グリソン右枝から分枝する尾状葉枝の処理が鏡視下操作のみでは困難であった。そのため心窩部と右肋弓下のポート間を小開腹し、直視下に尾状葉枝2本を結紮・切離し、腫瘍を摘出した。すでに腫瘍背側の剥離操作が十二分になされていたので、小開腹下の視野でも安全かつ容易に行うことが出来た。手術時間は299分、出血量は270mlであった。

切除標本: 大きさ42×36×28mmで、表面は正常肝に覆われた充実性の肝腫瘍であった。腫瘍剖面は黄白色で、ほぼ均一であり、壊死や血腫を認めなかった (図5a, b)。

病理組織学的所見: 正常肝組織との境界が明瞭な、被膜のみられない腫瘍性病変を認めた。淡明あるいは好酸性の豊かな細胞質と大型核を有する細胞が認められ (図5c), melanoma-specific antigen (HMB-45) 陽性であった (図5d)。また α -SMA, CD31は陽性であり, hepatocyte, AFP, CK7は陰性であった。腫瘍内に脂肪細胞を殆ど認めなかった。髄外造血や炎症細胞浸潤はなかった。核分裂像はほとんど認めなかった。以上より最終診断は肝血管筋脂肪腫 (AML), 筋腫型とした。

経過: 術後経過は良好であり、第2病日から食事を開始、第3病日に点滴終了、第9病日に退院した。術前・術翌日・術後7日目の白血球数は5020, 6840, 5480/mm³, CRPは0.0, 1.3, 0.2mg/dlと術後炎症反応はほとんど認めなかった。

考 察

肝AMLは画像診断の進歩とともに発見の機会が増えているが、診察時に本疾患を念頭においていないと術前診断は困難である。右季肋部痛などの症状を認めることもあるが、半数は症状がなく、検診や

他の病気の検査・剖検などで偶然、発見される⁵⁾。肝AMLは腎血管筋脂肪腫のように結節性硬化症の臨床徴候（顔面の皮疹・てんかん発作・精神遅滞）を合併する症例は5.6%と少ない^{5, 6)}。

野々村らの報告⁵⁾では、女性に好発し、男女比は1:2.6である。中年に多い腫瘍だが、年齢範囲は10~86歳に及ぶ。ほとんどの場合単発例であり、多発例は6.7%と少ない⁷⁾。正常肝を背景に発生する場合が多い。肝内発生部位の偏りはなく、集計された124個中、尾状葉原発は8個であった。

典型的肝AMLは画像上、超音波では高エコー、単純CTではlow density, dynamic CTでは動脈相で強く造影される。MRIでは脂肪成分はT1強調で低~高信号、T2強調で高信号となる。血管造影ではhypervascularな像を呈する⁵⁾。また流出静脈が肝静脈である⁸⁾。組織学的には平滑筋・血管・脂肪細胞が混在し、その3成分の割合は症例によって異なる。脂肪成分の割合は5%以下から90%までと様々であり、これにより画像所見も大きく変化する⁹⁾。肝AMLの腫瘍内には大型異型細胞が出現し、この細胞は免疫染色でHMB-45陽性を示し、肝腫瘍の中で特異的とされている^{5, 8)}。髄外造血や炎症細胞浸潤も頻度が高い副所見である⁵⁾。

肝AMLは平滑筋・血管・脂肪の3成分が混在する通常型と、それぞれの成分の比率に応じた様々な亜型に分類されるが⁵⁾、本症例は免疫染色の結果から、筋腫型と診断した。脂肪成分がほとんど含まれない筋腫型は、本症例のように超音波でも低エコーを呈し、術前診断が困難とされていたが^{9, 10)}、最近では筋腫型肝AMLに対する認識も高まってきており、CTやMRIなど画像診断についての報告もある^{11, 12)}。我々の症例では認めなかったが、腫瘍の中心部に点状もしくは糸状のいびつな腫瘍血管が存在する場合は筋腫型肝AMLの可能性も考える必要がある¹¹⁾。

肝AMLは基本的には良性腫瘍との認識があったが、最近では悪性の報告例もわずかながら認められており、特に筋腫型はpotential malignancyの腫瘍として取り扱うべきとの意見もある^{5, 11)}。さらに本症例自体、早期肝細胞癌との鑑別に迷う場合も稀にあり、診断に迷う症例や巨大化したもの、肝外に突出し破裂の危険があるものは、手術の適応となる^{13, 14)}。

腹腔鏡下肝切除術は国内では1993年頃から行われ始め、ここ数年で急激に増加している¹⁵⁾。2010年か

らは保険取載され、一部の施設では肝外側区域切除術とともに肝部分切除術は定型化された術式になりつつある。肝AML、特に筋腫型では、いまだに画像診断のみでは確定診断に迷う場合もある。本邦での肝AMLに対する腹腔鏡下肝部分切除術の報告例は少ないが^{14, 16)}、診断困難例に行う腹腔鏡下手術は確定診断・治療を同時に行えるため、大変有用である^{14, 16, 17)}。さらに尾状葉など手技的に困難な部位であっても、肝外突出型など症例を選択すれば、本症例のように腹腔鏡下（補助下）肝切除術を行うことは可能と思われる。

おわりに

肝血管筋脂肪腫は稀な疾患であり、脂肪成分が少ない筋腫型などの場合は、特に診断に苦慮する場合もある。尾状葉などの手技的に困難な部位であっても肝外突出型腫瘍に対しては、診断・治療目的に腹腔鏡下（補助下）肝切除術を行うことは有用と思われる。

引用文献

- 1) Buell JF, Cherqui D, Geller DA, O'Rourke N, Iannitti D, Dagher I, Koffron AJ, Thomas M, Gayet B, Han HS, Wakabayashi G, Belli G, Kaneko H, Ker CG, Scatton O, Laurent A, Abdalla EK, Chaudhury P, Dutson E, Gamblin C, D'Angelica M, Nagorney D, Testa G, Labow D, Manas D, Poon RT, Nelson H, Martin R, Clary B, Pinson WC, Martinie J, Vauthey JN, Goldstein R, Roayaie S, Barlet D, Espat J, Abecassis M, Rees M, Fong Y, McMasters KM, Broelsch C, Busuttil R, Belghiti J, Strasberg S, Chari RS. World Consensus Conference on Laparoscopic Surgery: The international position on laparoscopic liver surgery: The Louisville Statement, 2008. *Ann Surg* 2009; 250: 825-830.
- 2) 趙 明浩, 山本 宏, 貝沼 修, 太田拓実, PARK SeongJin, 柳橋浩男, 有光秀仁, 小西孝宣, 池田 篤, 早田浩明, 鍋谷圭宏, 滝口伸

- 浩, 永田松夫. 腹腔鏡下肝切除・完全腹腔鏡下による肝切除術. 消化器外科 2010; 33: 1413-1422.
- 3) Dulucq JL, Wintringer P, Stabilini C, Mahajna A. Isolated laparoscopic resection of the hepatic caudate lobe: surgical technique and a report of 2 cases. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2006; 16: 32-35.
- 4) Kokkalera U, Ghellai A, Vandermeer TJ. Laparoscopic hepatic caudate lobectomy. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2007; 17: 36-38.
- 5) 野々村昭孝, 榎本泰典, 武田麻衣子, 笠井孝彦, 中峯寛和. 肝臓原発の血管筋脂肪腫・PEComaの病理. 診断病理 2008; 25: 155-170.
- 6) 中尾禎造, 森本泰介, 森敬一郎, 寫原康行, 田中明, 山岡義生, 小澤和恵, 伊藤亨, 河上聡, 賀集一平. 術前に診断し得た肝血管筋脂肪腫の2例と報告例の検討. 日臨外医学会誌 1994; 55: 150-158.
- 7) Tsui WN, Colombari R, Portmann BC, Bonetti F, Thung SN, Ferrell LD, Nakanuma Y, Snover DC, Bioulac-Sage P, Dhillon AP. Hepatic angiomyolipoma: a clinicopathologic study of 30 cases and delineation of unusual morphologic variants. *Am J Surg Pathol* 1999; 23: 34-48.
- 8) 工藤正俊. 多血性肝腫瘍の鑑別診断. 肝臓 2002; 43: 1-10.
- 9) 伊藤勝彦, 近藤福雄, 石井隆之, 大多和哲, 清水善明, 近藤英介, 西谷慶, 小川清. 特異な画像を呈したため術前診断が困難であった肝血管筋脂肪腫の1例. 肝臓 2007; 48: 175-180.
- 10) 文野真樹, 加藤昌秀, 小林透, 川口雅功, 喜田洋平, 湯川進. 術前診断が困難であった肝血管筋脂肪腫の1例. 肝臓 2002; 43: 370-375.
- 11) Ji JS, Lu CY, Wang ZF, Xu M, Song JJ. Epithelioid angiomyolipoma of the liver: CT and MRI features. *Abdom Imaging* 2012.
- 12) Boraschi P, Donati F, Gherarducci G. Imaging findings in myomatous angiomyolipoma of the liver. *Abdom Imaging* 2012.
- 13) 待木雄一, 二村雄次, 早川直和, 新谷順一, 近藤哲, 椰野正人, 宮地正彦, 長坂徹郎. 肝血管筋脂肪腫の1切除例. 日消外会誌 1993; 26: 2836-2840.
- 14) 森田眞照, 石橋孝嗣, 原均, 奥田準二, 土肥健彦, 西口完二, 岩本充彦, 井上仁, 谷川允彦. 術前診断にて肝血管筋脂肪腫が疑われ腹腔鏡下肝切除を施行した1例. 日消外会誌 2000; 33: 1503-1506.
- 15) 日本内視鏡外科学会. 内視鏡外科手術におけるアンケート調査-第10回集計結果報告. 日鏡外会誌 2010; 15: 565-671.
- 16) 戸田孝祐, 後藤田直人, 細川勇一, 加藤祐一郎, 木下敬弘, 高橋進一郎. 術前診断に苦慮した肝血管筋脂肪腫に対し腹腔鏡下肝部分切除術を施行した1例. 日鏡外会誌 2012; 17: 107-112.
- 17) Ramia JM, De la Plaza R, Quinones J, Sanchez-Tembleque MD, Caminoa A, Veguillas P, Garcia Parreno J. Three trocars laparoscopic resection of angiomyolipoma of the liver. *Int J Hepatol* 2012.

Hepatic Angiomyolipoma Originating in the Caudate Process —A Case Report—

Toru KAWAOKA, Takehisa FUKADA,
Taichi KUWAHARA, Satoshi MATSUKUMA,
Tadashi KANEKO, Toshio HARADA,
Sakurao HIRAKI, Shintaro FUKUDA,
Youhei HARIMA¹⁾, Naoki URAYAMA¹⁾,
Fusako HISANO¹⁾, Yuko MATSUZAKI¹⁾ and
Kazutoshi SANUKI¹⁾

Department of Surgery, Ube Industries Central Hospital, 750 Nishikiwa, Ube, Yamaguchi 755-0151, Japan 1) Department of Gastroenterological medicine, Ube Industries Central Hospital, 750 Nishikiwa, Ube, Yamaguchi 755-0151, Japan

SUMMARY

A 41-year-old woman was admitted to our hospital for an abdominal ultrasonography, which revealed a hypoechoic liver tumor. She had no past medical history and no risk factors for liver disease. Dynamic computed tomography and MRI

revealed a protrusive increasing liver tumor about 4cm in maximal diameter arising from segment I. These examinations using contrast medium showed enhancement in the early phase and washout in the delay phase. The T1-weighted MR image showed a low intensity, and the T2-weighted image showed a little high intensity. Hepatic angiography showed a hypervascular tumor. Liver function tests were normal, and levels of serum tumor markers, including Alfa-fetoprotein and protein induced by vitamin K absence or antagonist II, were within normal ranges. Laparoscopic operation was indicated for the purpose of diagnosis and treatment. The extrahepatic growing soft tumor originating in the caudate process was confirmed, and laparoscopy-assisted partial hepatectomy was performed. The operation time was 299 minutes, and the blood loss was 270ml. Postoperative course was uneventful. Histology showed a myomatous angiomyolipoma of the liver.

Laparoscopy-assisted liver resection is useful for a tumor with difficult diagnosis.