

Case of Resection of Hepatobiliary Cystadenoma,
Difficult to Differentiate from Adenocarcinoma

| | |
|-------|---|
| メタデータ | 言語: jpn 出版者: 公開日: 2017-03-08 キーワード (Ja): キーワード (En): 作成者: 椿, 貴佳, 小練, 研司, 呉林, 秀崇, 加藤, 成, 藤本, 大裕, 森川, 充洋, 村上, 真, 廣野, 靖夫, 前田, 浩幸, 片山, 寛次, 今村, 好章, 五井, 孝憲, Tsubaki, Takayoshi, Koneri, Kenji, Kurebayashi, Hidetaka, Kato, Shigeru, Fujimoto, Daisuke, Morikawa, Mitsuhiro, Murakami, Makoto, Hirono, Yasuo, Maeda, Hiroyuki, Katayama, Kanji, Imamura, Yoshiaki, Goi, Takanori メールアドレス: 所属: |
| URL | http://hdl.handle.net/10098/10079 |

腺癌との鑑別が困難であった肝嚢胞腺腫の1切除例

椿 貴佳, 小練研司, 呉林秀崇, 加藤 成, 藤本大裕, 森川充洋
村上 真, 廣野靖夫, 前田浩幸, 片山寛次^{*1}, 今村好章^{*2}, 五井孝憲
医学部附属病院 第一外科, 同がん診療推進センター^{*1}, 同病理診断科^{*2}

Case of Resection of Hepatobiliary Cystadenoma, Difficult to Differentiate from Adenocarcinoma

TSUBAKI, Takayoshi, KONERI, Kenji, KUREBAYASHI, Hidetaka, KATO, Shigeru, FUJIMOTO, Daisuke, MORIKAWA, Mitsuhiro, MURAKAMI, Makoto, HIRONO, Yasuo, MAEDA, Hiroyuki, KATAYAMA, Kanji^{*1}, IMAMURA, Yoshiaki^{*2} and GOI, Takanori
First Department of Surgery, Division of Medicine, Faculty of Medical Sciences, University of Fukui,
Cancer Care Promotion Center, University of Fukui Hospital ^{*1},
Department of Pathology, University of Fukui Hospital ^{*2}

Abstract:

The patient was a 79-year-old woman. Her chief complaint was upper abdominal pain. Her previous doctor revealed a cystic lesion over 20 cm in size by an abdominal ultrasound, and she was introduced to our department. There was no rise in the serum tumor marker. An abdominal CT revealed a cystic lesion, occupying the entire right hepatic lobe with an internal solid lesion. In preoperative diagnostic imaging, we could not distinguish hepatic cystadenoma from hepatic cystadenocarcinoma. We did aspiration of cyst fluid through the skin to determine the contents and reduce the size of the lesion, and then performed an extended right hepatectomy. We diagnosed hepatic cystadenoma by pathological examination of extirpated specimen. It is difficult to do differential diagnosis regarding cystadenoma and adenocarcinoma preoperatively, so we need to make a plan of treatment with resection in mind in cases involving giant cystic lesions.

Key Words: liver cyst, Hepatobiliary cystadenoma, Hepatobiliary cystadenocarcinoma, CA19-9, resection

要旨:

症例は79歳の女性。主訴は上腹部痛であり、前医の腹部超音波検査で20 cmを超える嚢胞性病変を指摘され当科紹介された。血清腫瘍マーカーの上昇は認めず、腹部CTで肝右葉全体を占拠する内部に充実成分を伴った嚢胞性病変を認めた。術前画像診断では肝嚢胞腺腫と肝嚢胞腺癌の判別は困難であり、内容の確認と病変の縮小を企図して経皮的嚢胞穿刺吸引を行った後に拡大肝右葉切除術を施行した。摘出標本の病理検査で肝嚢胞腺腫と診断された。嚢胞腺腫と嚢胞腺癌の術前の鑑別診断は困難であり、特に巨大な嚢胞性病変に対しては切除を念頭にマネージメントすることが必要と考えられた。

キーワード: 肝嚢胞, 肝嚢胞腺腫, 肝嚢胞腺癌, CA19-9, 切除

はじめに

肝嚢胞腺腫は肝嚢胞性疾患のわずか5%を占める比較的稀な疾患である⁽¹⁾。今回われわれは肝嚢胞腺腫の1切除例を経験したので文献的考察とともに報告する。

症例

症例：79歳，女性。

主訴：右季肋部痛。

既往歴：20代，虫垂炎にて手術。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：高血圧で紹介医心臓血管外科に入院中。2016年4月中旬より右季肋部痛を自覚し紹介医を受診した。腹部超音波検査で肝右葉に20cm大の嚢胞性病変を認めたため，精査加療目的に当科紹介初診した。

入院時現症：身長139.8cm，体重50.3kg，BMI 25.7肥満を認め，上腹部は膨満し右季肋部に4横指程度，肝臓を触知した。

入院時検査成績：血液一般検査に異常は認めず，腫瘍マーカーはいずれも正常範囲内であった。ICG試験15分値は14%であり軽度の排泄遅延が認められた。

腹部超音波検査所見：肝右葉に20cm大の巨大な嚢胞性病変を認めた。病変の内部には辺縁不整の6×5cm大の充実成分を認めた(図1)。ドップラーでは嚢胞内，充実部ともに血流を認めなかった。

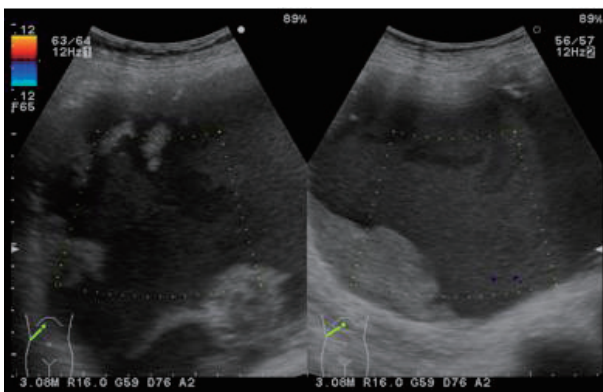


図1 腹部超音波：嚢胞内部に辺縁不正の充実性成分を認めた。

腹部造影CT検査所見：胸水や腹水はなく，明らかなリンパ節の腫大も認めなかった。超音波検査同様，肝右葉に巨大な嚢胞性病変を認めた(図2)。

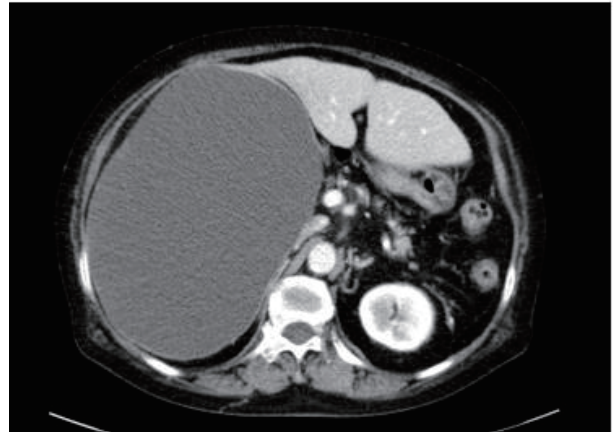


図2 腹部造影CT：肝右葉を中心に巨大嚢胞を認める。

上縁は横隔膜直下から下縁は右腎臓の高さであった。嚢胞内部の頭側に5cmほどの辺縁不整でまだらに造影される腫瘤を認めた(図3)

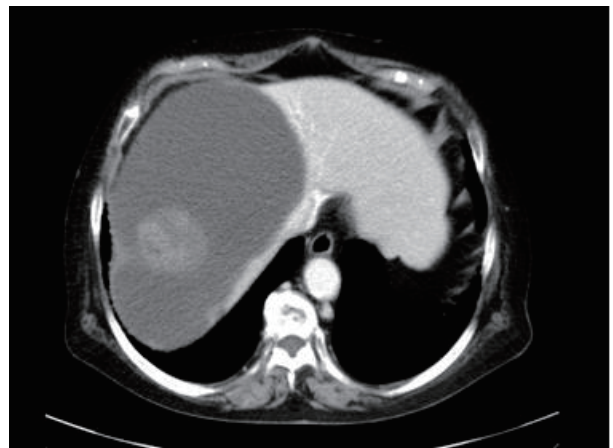


図3 嚢胞内部の頭側に造影効果のある腫瘤を認める。

腹部MRI検査所見：T2強調画像で肝右葉に内部が液体で満たされた嚢胞を認めた。また頭側に境界明瞭な充実性成分を認め，同部は拡散強調画像で高信号を呈していた。尾側には凝固した血液もしくはフィブリン塊と思われる集積が散見された(図4)。

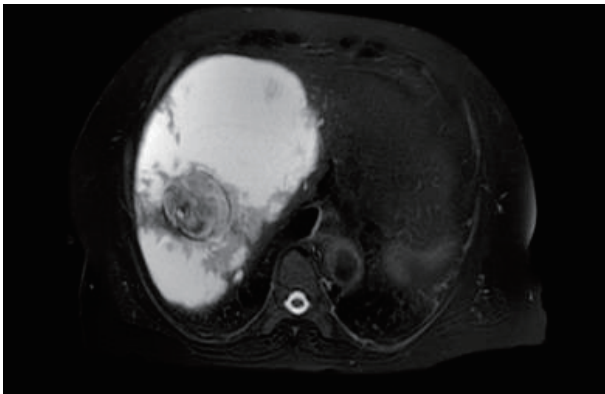


図4 腹部MRI (T2) : 嚢胞内部は液体で満たされ、頭側には境界明瞭な腫瘤を認めた。

以上から、肝嚢胞腺腫もしくは腺癌を疑い、手術を前提として内容の確認と病変の縮小を企図し、エコーガイド下に経皮的嚢胞穿刺吸引を行った。

術前の画像診断では、主病変と胆管との交通は認められなかった。

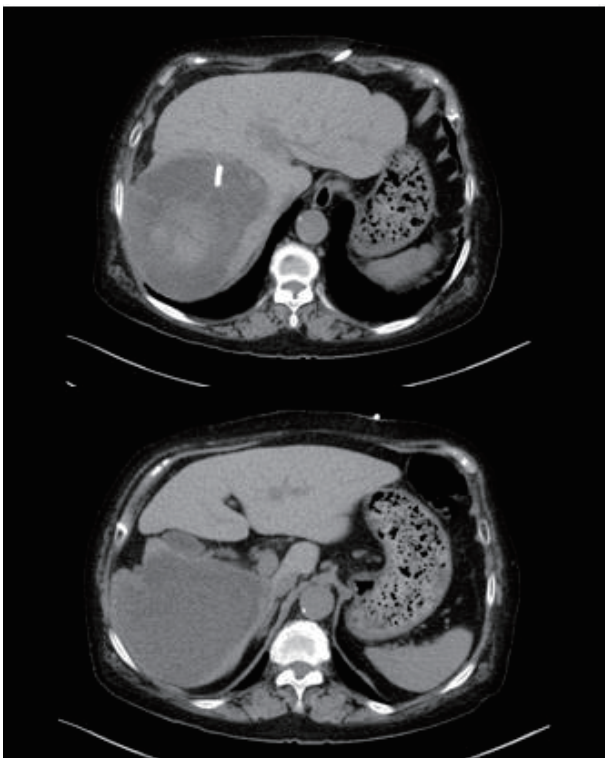


図5 腹部造影CT (PTAD後) : 嚢胞は縮小したが、腫瘤は残存。

腹部造影CT (PTAD後) : 嚢胞は縮小しているが、頭側の腫瘤の大きさは変化していない

(図5)。嚢胞液の細胞診の結果はclass IIであった。嚢胞液の生化学検査は未提出であった。

また、嚢胞内容液のCEAは1.0 ng/ml, CA19-9は22.1 ng/mlであった。1日に100-200 ml程度の排液を認め、経皮的嚢胞穿刺ドレナージから38日目に手術を施行した。

手術所見 : 開腹すると肝右葉全体を占める巨大な嚢胞性病変を認めた。前区域に5 cm程度の弾性軟の腫瘤を触知した。胆嚢摘出後、Pringle 阻血を行い拡大肝右葉切除を行った。切離面に病変は露出しなかった。手術時間は5時間49分、出血量は2610 mlであったが嚢胞からの排液が多くを占めていた。術中有害事象なく終了した。

切除標本 : 嚢胞は単房性であり、肉眼的に内部に凝血塊様の物質を認める病変であった(図6)。胆管との交通ははっきりしなかった。内容物にはフィブリンを主体とする変性物が存在し、内腔の被覆上皮は胆管上皮様の一層の扁平~立方上皮で覆われていた(図7)。異形細胞は目立たなかった。免疫染色の結果は、CA19-9, CK7, CK19が陽性であり(図8)、嚢胞を被覆する上皮は胆管上皮様の性質を示した。間質にも同様の陽性像を示す微小な管腔構造が多数認められた。また卵巣様間質の確認のためER, PgR, inhibinの染色を行ったが、これらは陰性であり(図9)、明らかな卵巣様間質は確認できなかった。以上から組織診断の結果はHepatobiliary cystadenomaと考えられた。

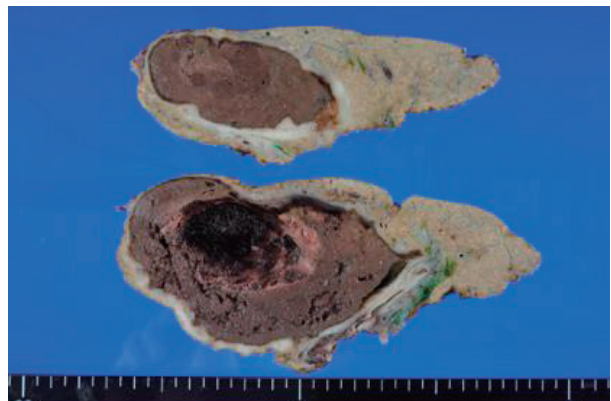


図6 内部に凝血塊様の物質を容れる嚢胞性病変であった。

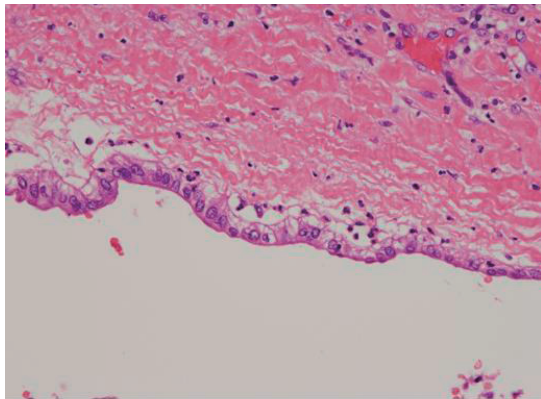


図7 内腔を覆う上皮は胆管上皮様の一層の扁平～立方上皮であった。

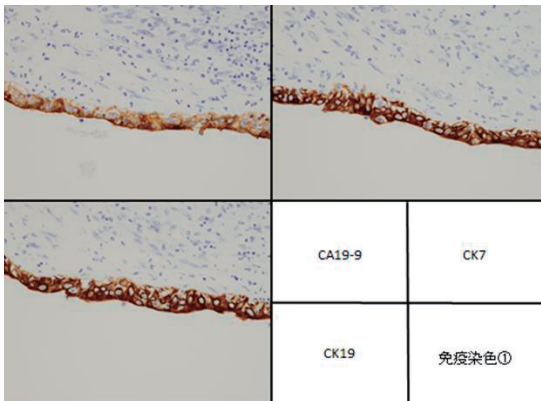


図8 免疫染色では以上が陽性であった。

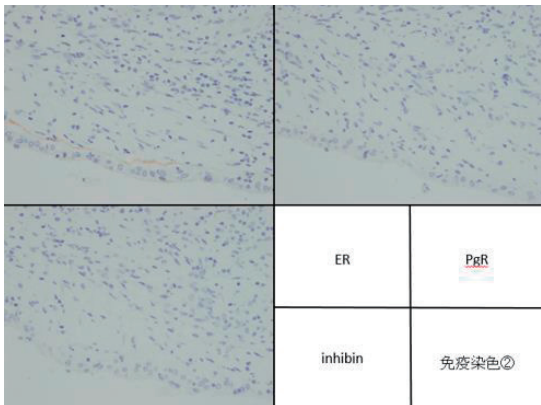


図9 卵巣用間質のための染色。明らかな卵巣用間質は確認できなかった。

術後経過：経過観察目的でICU入室したが、2日後に退室した。術後4日目に水分摂取開始、5日目に食事摂取開始した。7日目にWBC 14000と炎症反応の上昇を認めたが、CTで明らかな膿瘍形成などは認めなかった。以後、次第に炎症反応は軽快し、術後21日目に経過良好のため退院となった。

考察

肝嚢胞腺腫は肝嚢胞性疾患の一部として分類され、肝原発の極めてまれな上皮性嚢胞性腫瘍であるが、その組織形成に関してはいまだ不明瞭である。1958年のEdmondsonの報告が最初とされる。女性に多く、小森山らの報告では1983年から1999年まで本邦では34例が報告され、そのうち男性は9例(26%)、女性は25例(74%)であった⁽¹⁾。将来的に悪性化するmalignant potentialを有すると考えられ、本邦でも長年の経過を経て悪性化した報告が見られた^[2-3]。

そこで重要となるのが肝嚢胞と嚢胞腺腫、腺癌の鑑別であるが、悪性化を示唆する所見として、多房性、嚢胞壁の肥厚、不整、充実成分の存在、隔壁の存在、増大傾向、嚢胞内のCT濃度の上昇、血性内容液、血清CA19-9の上昇などがある^[3-4]。

画像での鑑別では、単純性嚢胞は通常、超音波やCTで壁の肥厚や石灰化、嚢胞内の充実成分や多房性の所見がない等の所見が認められる。また血管造影で新生血管の造成や嚢胞壁の濃染が見られれば、嚢胞腺腫や嚢胞腺癌が疑われる。しかし腺腫と腺癌の鑑別は画像上では困難なことが多い⁽⁵⁾。

嚢胞液中の腫瘍マーカーについてはCEA、CA19-9が異常高値を示すとする報告が多い。特にCA19-9は顕著であり、数万から数十万単位となることもある。しかし本例のようにCEA、CA19-9とも正常値の場合もあり、腫瘍マーカーでの良悪性の鑑別も困難な場合がある⁽²⁾⁽⁶⁾⁽¹¹⁾。

治療法に関しては開窓術、造袋術、核出術、肝切除術等の報告がある。肝嚢胞腺腫に対する基本的な治療方法は外科的切除であるが、その理由は前述したように嚢胞腺癌との鑑別が難しいことにある⁽⁹⁾。さらには長期的な経過で癌化した例も報告されている⁽³⁾⁽¹⁰⁾。Dean J.Arnaoutakisらの報告では肝嚢胞腺腫の一年生存率、三年生存率、五年生存率はそれぞれ95.0%、86.8%、84.2%と良好である。しかし、

嚢胞腺腫として治療したが嚢胞腺癌として再発した例もわずかながらある⁽⁶⁾。また不完全切除となった後に再発した症例も報告されているため、十分な surgical margin を確保するよう注意が必要である⁽⁷⁾。

今回の症例は腹部 CT で壁の肥厚や石灰化、多房性の所見は認めなかったが、わずかに造影される嚢胞内の充実成分を認めたため、画像上の良悪性の鑑別は困難であった。以上より、術前鑑別が困難な症例が多いことから、基本的には切除を念頭にマネジメントすることが必要と考えられた。

結語

肝嚢胞腺腫の1切除例を経験した。嚢胞腺腫と嚢胞腺癌は術前検査では区別しがたい場合も多く、十分な surgical margin を確保した切除が必要であると考えられた。

文献

- 1) 小森山広幸, 榎本武治, 田中一郎, 萩原優, 品川俊人. 肝嚢胞腺腫の1例. 日臨外会誌. 61(7) : 1848-1852, 2000.
- 2) 北尾優子, 関寿人, 久保田佳嗣, 野中恒幸, 立岩二郎, 水野孝子, ほか. 肝嚢胞腺腫の1例 - 穿刺液中腫瘍マーカー測定の有有用性について -. 日消誌 87(4) : 1078-1082, 1990.
- 3) 三田村篤, 天本明子, 鈴木雄, 竹花教, 遠藤義洋, 北村道彦, 君塚五郎. 長期の経過で肝嚢胞腺腫から嚢胞腺癌に移行したと思われる1例. 日臨外会誌. 66(5) : 1146-1150, 2005.
- 4) 伊藤忠雄, 野口明則, 斎藤朋人, 中島慎吾, ほか. 肝嚢胞と診断され経過観察されていた肝嚢胞腺癌の1例. 日消外会誌. 42 : 651-656, 2009.
- 5) 真鍋達也, 武田成彰, 阿部祐治, 西原一善, 勝本富士夫. 肝嚢胞腺腫の3例. 日臨外会誌. 62(4) : 1002-1006, 2001.
- 6) 竹内丙午, 鈴木正徳, 福原賢治, 海野倫明, ほか. 肝嚢胞性疾患 49 例の臨床病理学的検討. 日消外会誌. 30(3) : 719-723, 1997.
- 7) Vladislav Treska, Jiri Ferda, Ondrej Daum, Vaclav Liska, Tomas Skalicky, Jan Bruha. Intrahepatic biliary cystadenoma-diagnosis and treatment options. Turk J Gastroenterol. 27: 252-6, 2016.
- 8) Dean J. Arnaoutakis, Yuhree Kim, Carlo Pulitano, Victor Zaydfudim, Malcolm H. Squires, David Kooby, Ryan Groeschl, et al. Management of Biliary Cystic Tumors: A Multi-institutional Analysis of a Rare Liver Tumor. Ann Surg. 261(2): 361-367, 2015
- 9) 新谷文彦, 白水雄雄: 肝嚢胞腺腫の1例. 日本外科系連合学会誌. 26 : 269-271, 2001.
- 10) 松下一之, 竜崇正, 佐野友昭ほか. 肝嚢胞腺癌の2切除例. 日消外会誌. 24(7) : 2041-2045, 1991.
- 11) 福重寛, 永渕幸寿, 武田成彰, 大里敬一. 嚢胞液中および開窓術後の血中 CA19-9 が高値を呈した巨大肝嚢胞の1例. 日消外会誌. 26(9) : 2338-2342, 1993.