

# AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

旭川厚生病院医誌 (2002.06) 12巻1号:40～45.

肝腫瘍生検にて診断し得た脂肪成分の少ないangiomyolipomaの1例

佐藤 龍, 大田人可, 稲葉勇平, 三好茂樹, 千葉 篤, 太田  
智之, 藤井常志, 村上雅則, 折居 裕, 齋藤博哉, 里 梯子

## 肝腫瘍生検にて診断し得た脂肪成分の少ないangiomyolipomaの1例

佐藤 龍 大田 人 可 稲場 勇 平  
 三好 茂 樹 千葉 篤 太田 智 之  
 藤井 常 志 村上 雅 則 折居 裕  
 同放射線科 齋藤 博 哉 同病理 里 悌 子

### 要 旨

症例は49歳の女性。高血圧にて前医に通院中、スクリーニングの腹部超音波検査で肝腫瘍を認めため、当科を紹介され精査目的に入院となった。超音波検査所見は肝右葉に約10cm大の境界明瞭な高エコーと低エコーの混在する腫瘍であった。CT検査では腫瘍は不均一に濃染され平衡相では周囲の肝実質より低吸収であり、内部に造影効果を受けない低吸収領域も認められた。MRI検査でも内部は不均一でT1低吸収、T2高吸収、早期造影効果を認めた。腹部血管造影検査では強い腫瘍濃染を認め、後期相まで持続しておりCTAPではperfusion defectとして捉えられた。画像上は肝細胞癌に矛盾しないがHBV、HCVとも陰性であり、腫瘍マーカーも陰性であることから肝腫瘍生検を施行した。平滑筋成分を主成分とし、脂肪成分は少なかったがHMB-45、actin染色にて陽性であることからangiomyolipomaと診断し、経過観察している。

### I. 諸 言

Angiomyolipoma (以下AML) は血管、筋、脂肪成分からなる良性の腫瘍であり腎に好発する。肝原発のAMLは比較的まれであるが、近年画像、肝生検の進歩に伴いAMLの報告が増加している。今回我々は肝生検にて診断し得た脂肪成分の少ないAMLの1例を経験したので報告する。

### II. 症 例

患 者：49歳の女性。

主 訴：特になし。

家族歴：特記すべき事項なし。

既往歴：小学生の時虫垂炎、46歳時から高血圧を指摘されている。

嗜 好：アルコール (-)、喫煙 (-)

現病歴：高血圧にて前医に通院中、スクリーニングの腹部超音波検査にて肝腫瘍が疑われたため、当科を紹

介され精査加療目的に入院となった。

入院時現症：身長156.0cm、体重54.0kg。BP120/72。眼瞼結膜に貧血なく眼球結膜に黄疸を認めない。肝脾触知せず、胸部にも理学的異常所見なし。浮腫もなく神経学的異常所見もなし。

入院時血液検査所見 (表1)：肝機能、腫瘍マーカーを含め特に異常所見は認めない。

腹部超音波検査所見 (図1)：肝右葉に径10cm大の高エコーと低エコーの混在する腫瘍を認め、内部には約2cm大のcystic changeを有していた。境界は明瞭であるが明らかな被膜は認めなかった。

腹部CT検査所見 (図2)：肝右葉S6/7を中心にlow density areaを認め、内部にはcentral low density areaを伴っており全体的には不均一なdensityを呈していた。動脈相では早期より不均一な強い濃染を認め、濃染は後期相まで持続しており、平衡相では肝実質よりもdensityは低下していた。

MRI検査所見 (図3)：肝右葉S6/7にT1強調像にて不均一なlow intensity、T2強調像にて不均一なhigh intensityを呈しており、T2強調像にて内部には出血、

Table Laboratory data on admission.

Complete Blood Count		Na	140 mEq/l
WBC	5500 /mm <sup>3</sup>	K	4 mEq/l
RBC	429x10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	Cl	107 mEq/l
Hb	13.3 g/dl	T.Cho	146 mg/dl
Ht	39.3 %	Serological Exam.	
Plt	22.4x10 <sup>4</sup> /mm <sup>3</sup>	CRP	0.0 mg/dl
Blood Chemistry		HBs Ag	(-)
TP	6.4 g/dl	HCV	(-)
Alb	3.5 g/dl	Tumor Marker	
T-Bil	0.7 mg/dl	CEA	0.5 ng/ml
ChE	138 IU/l	CA19-9	2.8 U/ml
ALP	259 IU/l	AFP	1.2 ng/ml
AST	18 IU/l	PIVKA-II	17 mAU/ml
ALT	21 IU/l	SIL2-r	344 U/ml
LDH	289 IU/l		
γ-GTP	53 IU/l		
BUN	8.4 mg/dl		
Cre	0.5 mg/dl		

表1

のう胞変性を示唆するhigh intensityな部分と脈管と思われる構造も見られた。Dynamic studyでは早期より不均一な強い濃染を認めた。

血管造影検査所見 (図4): 腹腔動脈造影では右葉に早期より強いtumor stainを認め、腫瘍からは屈曲、蛇行したdrainage veinがみられた。門脈造影では門脈は開存しており、特に異常は認められなかった。CTA (図5A)では不均一な濃染を呈し、CTAP (図5B)ではperfusion defectを認めた。

以上より画像上はCT, MRI検査にて早期濃染を認め、CTAPではperfusion defectを呈しており肝細胞癌として矛盾はしないが、HBV, HCVとも陰性、アルコール歴もなくまた腫瘍マーカーも陰性であるため肝腫瘍生検を施行した。

肝腫瘍生検所見 (図6): 18G生検針を用いて腫瘍生検を行った。腫瘍は、平滑筋成分が主成分であり脂肪成分は明らかではなかったが、HMB-45及びsmooth muscle actinにて染色され、脂肪成分の少ないAMLと診断し経過観察とした。

6ヶ月後の超音波検査 (図7)では腫瘍の増大はなく、現在も経過観察中である。

### Ⅲ. 考 按

AMLは病理組織学的に血管、平滑筋、成熟脂肪細

胞からなる間葉系腫瘍と考えられており、発生部位は腎が約90%と多く肝原発は約5%と報告されている。3成分の割合は症例により異なり、脂肪組織の割合に見ても5~90%<sup>1)</sup>と著しい幅がある。大きさに関しても0.7cm<sup>2)</sup>~36cm<sup>3)</sup>と幅があり、多発していた症例の報告<sup>4)</sup>もある。AMLは比較的まれな疾患であり、診断時に念頭に置いていないと確定診断は困難である。

AMLの画像は脂肪の割合により様々であるが、一般的な特徴として1. US上境界明瞭なhyperechoic patternを示す、2. CT上境界明瞭なlow density areaを示し、早期より強い濃染像を呈する、3. MRI上T1強調像にてhigh intensity, T2強調像にてiso~high intensityを示す、4. 血管造影上、動脈相で拡張、屈曲、蛇行する新生血管が多数存在し早期より強いhypervascularityを呈する等が挙げられている<sup>5)</sup>が、ポイントとして各種造影検査にて腫瘍濃染像を呈することや、腫瘍内に脂肪成分を証明することである。鑑別疾患として血管、脂肪を含む腫瘍として肝細胞癌が第一に挙げられるが、本症例のように脂肪成分の少ない腫瘍も認められ鑑別が容易でない症例も多く、手術となった症例も少なくはない<sup>2), 6), 7)</sup>。

肝細胞癌との鑑別点として 1. 背景肝が正常肝であること、2. 肝炎ウイルスが陰性でありアルコール歴もないこと、3. 腫瘍マーカーが陰性であること、4. 屈曲

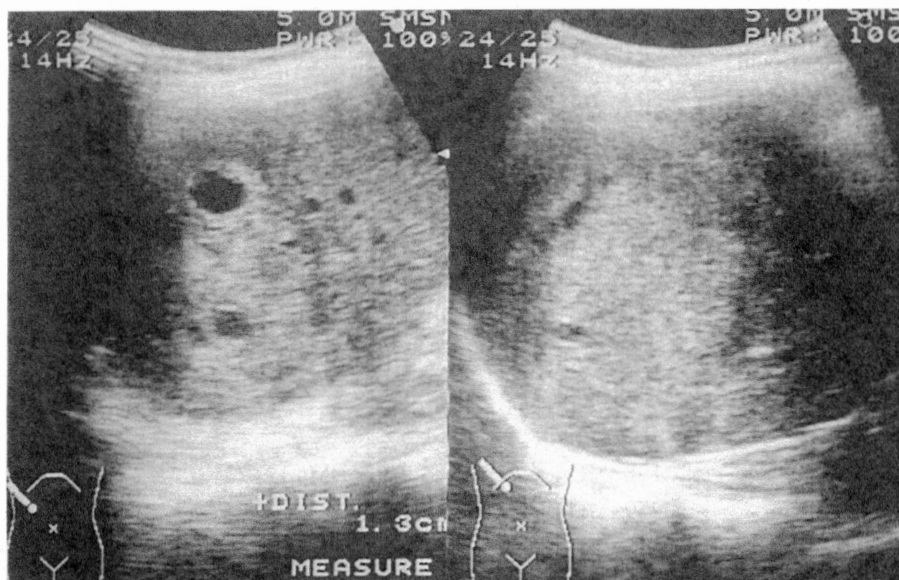


図1 肝右葉に径10cm大の高エコーと低エコーの混在する腫瘍を認める。

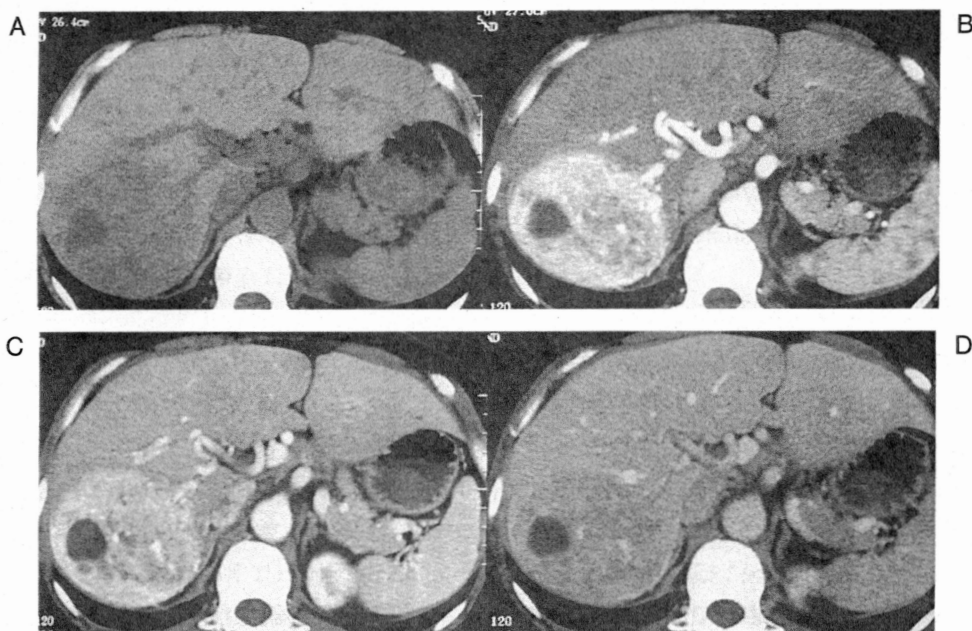


図2 単純CT (A) では肝右葉にlow density areaを認め、早期相 (B) より不均一な強い濃染を認め、後期相 (C) まで濃染は持続している。平衡相 (D) では周辺肝実質よりdensityは低下している。

蛇行した太いドレナージveinを認めること、5. 被膜を有さないこと等が挙げられ、また脂肪成分を伴った肝細胞癌では強いhypervascularを呈することは少ないことも加味される。しかし本症例のように脂肪成分の少ないAMLの存在や、肝炎ウイルス陰性、腫瘍マーカー陰性の肝細胞癌も存在し、画像のみで完全に肝細胞癌を否定することは困難であり、肝腫瘍生検を施行しAMLと診断した報告<sup>8)</sup>も認められる。近年ではメラノーマの際に染色されるHMB-45がAMLの診断に有用であると報告<sup>9)~11)</sup>されており、smooth muscle actin染色と共にAMLの診断の根拠となっている。

治療方針については議論の余地があると思われる。今までは肝細胞癌との鑑別が困難である、悪性化の可能性や出血や破裂の危険性があるといった理由のために手術となった症例が多い。しかし、過去に悪性化したという報告はなく、出血や破裂に関しても腫瘍内出血の報告はいくつか有るが、貧血や自覚症状を有する出血は本邦で1例<sup>12)</sup>のみで、破裂に関しても欧米報告例2例<sup>13), 14)</sup>しか報告がない。肝に比べて出血や破裂などの可能性の高いとされる腎のAMLについても腫瘍の大きさや自覚症状を考慮し、経過観察することが第一選択となっている。実際に4年間にわたり腫瘍の増

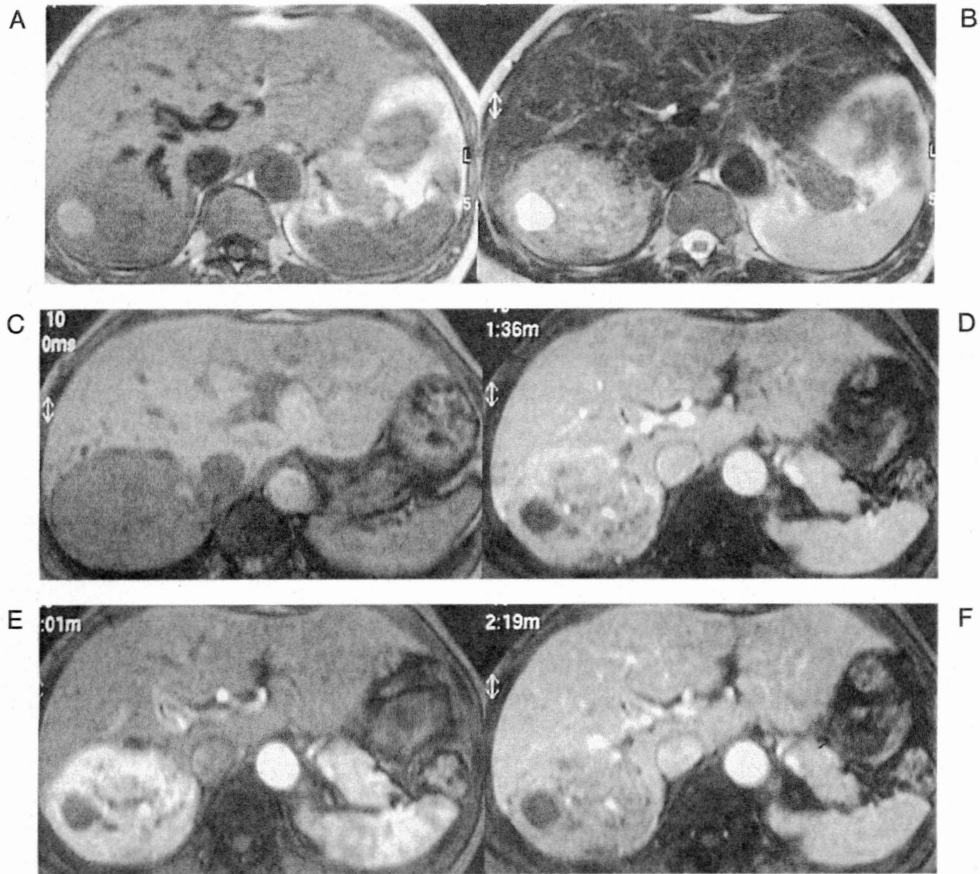


図3 T1強調像(A)では内部不均一なlow intensityを示し、T2強調像(B)では不均一なhigh intensityを示し、内部には脈管構造も認められる。Dynamic study (C~F) では早期より不均一な濃染を認める。

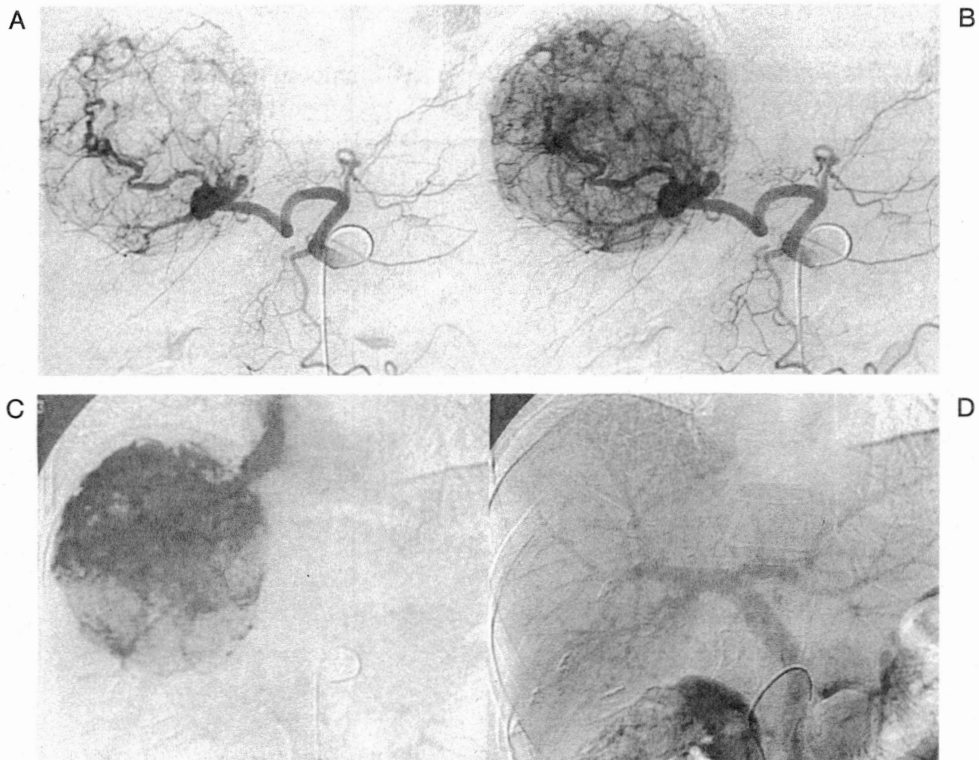


図4 血管造影検査(A,B)では肝右葉に早期より強い腫瘍濃染を認め、屈曲、蛇行したdrainage veinもみられる(C)。門脈造影(D)では門脈は開存している。



図5：CTA (A) では不均一な濃染を示し、CTAP (B) ではperfusion defectを認める。

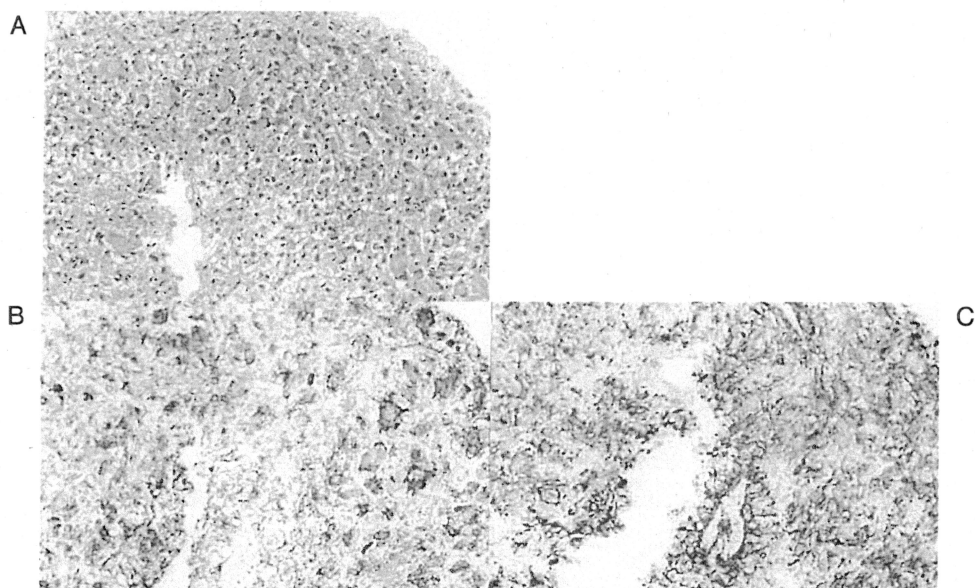


図6：肝腫瘍生検 (A) では平滑筋成分を主成分とし、HMB-45 (B)、smooth muscle actin (C) 染色に陽性である。

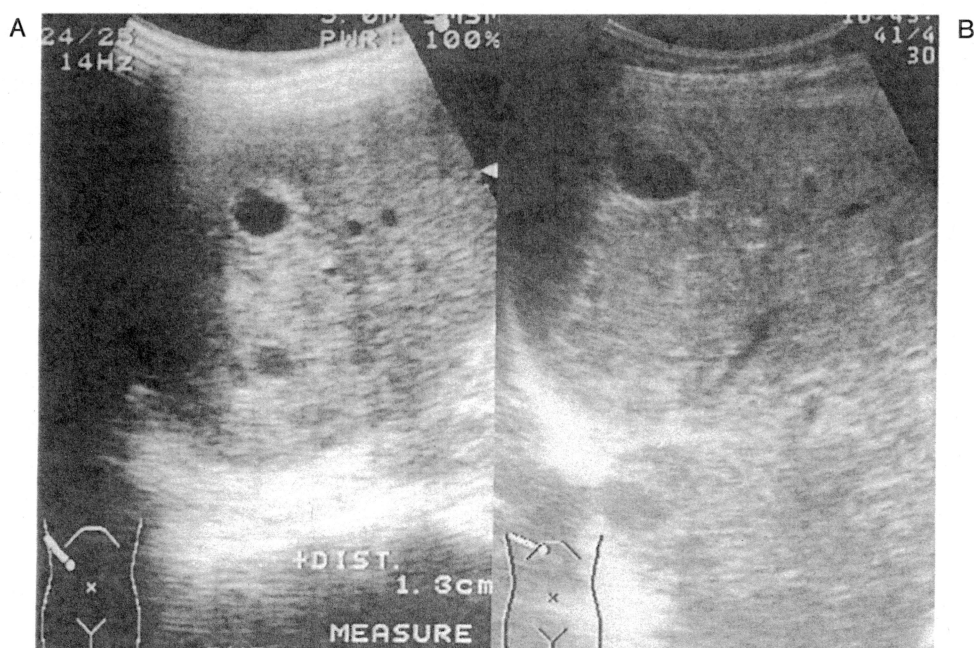


図7 入院時の超音波検査 (A) と比較し6ヶ月後の超音波検査 (B) では腫瘍の増大は認めない。

大を認めず経過観察されている症例<sup>5)</sup>もあり、今後画像診断や肝腫瘍生検の更なる進歩により診断率が向上することが予想され、AMLと診断された場合、経過観察も選択肢の一つに挙げても良いと思われる。

### Ⅲ. 結 論

肝腫瘍生検にて診断し得た脂肪成分の少ないangiomyolipomaの1例を経験した。現在経過観察中であるが6ヶ月後の超音波検査では増大傾向は認めていない。

### 参 考 文 献

1. Goodman, Ishak : Angiomyolipoma of the liver. Am J Surg Pathol 8 : 745-750, 1984
2. 赤津順一, 田中 裕, 鶴木秀明ほか : 細小肝癌との鑑別が困難であった肝血管筋脂肪腫の1例. 日消誌89 : 1305-1307, 1992.
3. 上田祐造, 三村 久, 津村 真ほか : 肝動脈瘤を伴った巨大なHepatic angiomyolipomaの1例. 肝臓25 : 925-930, 1984
4. 大久保雄介, 篠崎正美, 野崎和也ほか : 術前診断が困難であった肝多発血管筋脂肪腫の1例. Liver Cancer 3 : 100-105, 1997
5. 正宗 淳, 岡野 健, 佐竹賢三ほか : 超音波ガイド下吸引肝生検にて診断し、経過観察中の肝血管筋脂肪腫の1例. 日消誌90 : 180-84, 1993
6. 杉本涼二, 奥田康司, 木下寿文ほか : 術前診断に苦慮した肝血管筋脂肪腫の1切除例. 消化器画像1 : 397-402, 1999
7. 松下一之, 竜 崇正, 渡辺一男ほか : 肝血管筋脂肪腫の2治験例. 肝臓32 : 1046-1051, 1991
8. 伊達秀二, 辻 修一, 福岡治仁ほか : 肝の血管筋脂肪腫の1例. 臨放37 : 601-604, 1992
9. Nonomura A, Mizukami Y, Takayanagi N et al : Immunohistochemical study of hepatic angiomyolipoma. Pathol Int46 : 24-32, 1996
10. 佐藤修司, 坂本裕史, 伊藤英人ほか : 脂肪肝の経過観察中に発見された肝血管筋脂肪腫の1例. 日消誌94 : 861-865, 1997
11. 久野祐司, 木村昌之, 森 紀樹ほか : HMB-45抗体による免疫組織学的検討が診断に有用であった肝Aniomyolipomaの1症例. 肝胆膵36 : 439-445, 1998
12. 和栗暢生, 森山雅人, 橋立英樹ほか : 腫瘍内出血を来した巨大肝血管筋脂肪腫の1切除例. 肝胆膵38 : 145-51, 1999
13. G.Guidi, O. Catalano, A.Rotondo : Spontaneous rupture of a hepatic angiomyolipoma : CT findings and literature review. Eur. Radiol. 7 : 335-337, 1997
14. Huber C, Treutner KH, Steinau G et al : Ruptured hepatic angiomyolipoma in tuberosis complex. Langenbecks Arch Chir 381 : 335-337, 1997

## A CASE OF SMALL FAT ANGIOMYOLIPOMA, DIAGNOSED BY LIVER BIOPSY.

Ryu SATO<sup>1)</sup>, Hitoyoshi OHTA<sup>1)</sup>, Yuhei INABA<sup>1)</sup>  
Shigeki MIYOSHI<sup>1)</sup>, Atsusi CHIBA<sup>1)</sup>, Tomoyuki OHTA<sup>1)</sup>  
Tsuneshi FUJII<sup>1)</sup>, Masanori MURAKAMI<sup>1)</sup>, Yutaka ORII<sup>1)</sup>  
Hiroya SAITO<sup>2)</sup>, Teiko SATO<sup>3)</sup>

Key Words : angiomyolipoma / HMB-45

<sup>1)</sup>Dept. of Gastroenterology, JA Asahikawa Kosei Hospital, 1-24 Asahikawa 078-8211, Japan

<sup>2)</sup>Dept. of Radiology

<sup>3)</sup>Dept. of Pathology