

副腎 Myelolipoma の 2 例

大阪赤十字病院泌尿器科 (部長: 高橋陽一)

大森孝平・兪明德・堀井泰樹
真田俊吾*・松田公志**・高橋陽一

大阪赤十字病院病理部
佐々木正道

TWO CASES OF ADRENAL MYELOLIPOMA

Kouhei OHMORI, Meitoku YU, Yasuki HORII,
Shungo SANADA, Tadashi MATSUDA and Yoichi TAKAHASHI

*From the Department of Urology, Osaka Red Cross Hospital
(Chief: Dr. Y. Takahashi)*

Masamichi SASAKI

From the Department of Pathology, Osaka Red Cross Hospital

Myelolipoma of the adrenal gland is a benign oligosymptomatic tumor composed of various proportions of fat and bone marrow elements. We report two operated cases found incidentally in a 76-year-old man and 49-year-old man.

Key words: Adrenal myelolipoma, Incidentaloma

緒 言

副腎にできる myelolipoma は稀な良性腫瘍で、骨髄様組織と脂肪組織より構成される。1905年, Gierke¹⁾ により最初に報告され, 1929年, Oberling²⁾ により myelolipoma と命名された。従来剖検時に偶然発見されることが多かったが, 画像診断の進歩に伴い incidentally に発見されるケースが多くなりつつあり, われわれも偶然に発見し, 外科的切除を行ったいわゆる "incidentaloma" としての副腎 myelolipoma の 2 例を経験したので報告する。

症 例

症例 1

患者: 76歳, 男子

初診 1981年10月4日

主訴: なし

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 5~6年前より空腹時胃痛あり当院内科

通院中であったが, CT, 超音波検査で, 右副腎腫瘍を疑われ泌尿器科を受診した。

入院時現症: 身長 156 cm, 体重 48.5 kg, 胸部理学所的所見に異常を認めず, 血圧 140/70 mmHg. 腹部触診では, 腫瘍を触知せず, 肝臓, 両腎および脾臓も触知しない。外性器, 前立腺は視触診上異常を認めず, 表在リンパ節は触知しない。

入院時検査成績: 末梢血; RBC $426 \times 10^4/\text{mm}^3$, WBC $3,800/\text{mm}^3$, Hb 14.2 g/dl, Ht 43.0%, Plt $11.7 \times 10^4/\text{mm}^3$. 血液化学; T.P. 7.7 g/dl, GOT 22 IU/l, GPT 29 IU/l, LDH 298 IU/l, ChE 0.61 ΔpH , T. Bil 0.6 mg/dl, BUN 19.9 mg/dl, S-Cr 1.3 mg/dl, Na 141 mEq/l, K 4.9 mEq/l, Cl 104 mEq/l, Ca 4.5 mEq/l ホルモン検査; s-Adrenaline 22 pg/ml, s-Noradrenaline 191 pg/ml, s-Aldosterone 20.5 pg/ml, s-Cortisol 10.0 $\mu\text{g}/\text{dl}$, u-Adrenaline 8.0 $\mu\text{g}/24\text{ h}$, u-Noradrenaline 94.1 $\mu\text{g}/24\text{ h}$, u-17-OHCS 2.3 mg/24 h, u-17 KS 3.3 mg/24 h, u-VMA 4.6 mg/24 h. 検尿; 異常なし。

腹部超音波検査 (Fig. 1): 右腎上極に接して均一高エコーレベルの腫瘍が認められた。

* 現: 関西電力病院泌尿器科

** 現: 京都大学医学部泌尿器科学教室

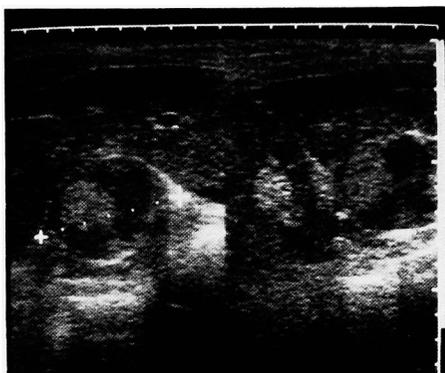


Fig. 1. Case 1. Abdominal ultrasonogram reveals a markedly echogenic mass in the right adrenal region.

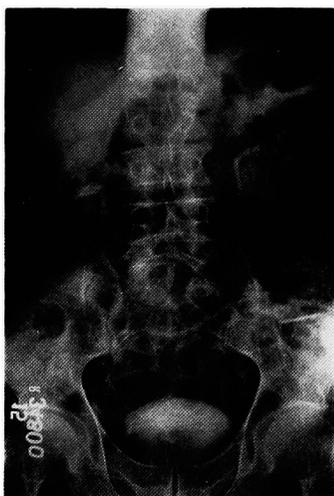


Fig. 2. Case 1. Preoperative excretory urography shows radiolucent mass at upper pole of right kidney.

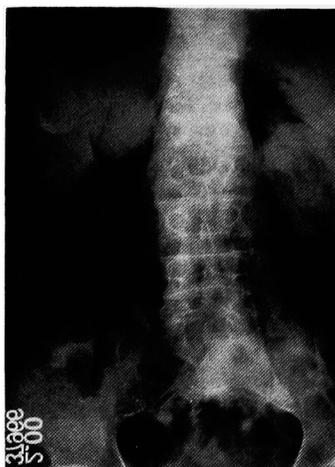


Fig. 3. Case 1. Pneumoretroperitoneum shows spherical mass at upper part of right kidney.

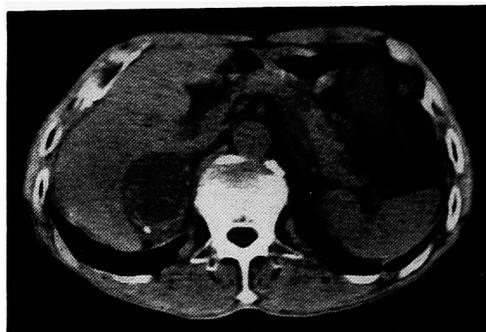


Fig. 4. Case 1. Abdominal CT scan revealing a right adrenal mass, partially encraching on the liver.

レ線学的検査：

排泄性腎盂造影；両腎とも造影剤の排泄は良好であるが、右腎全体の下方への偏位を認める (Fig. 2)。

後腹膜気体撮影；右腎は低位にあり、腎上極に接して球形の腫瘍陰影がみられる (Fig. 3)。

腹部 CT；肝右葉下方、右腎上方で下大静脈に接した肝外の腫瘍所見を認める。腫瘍は、low density で充実性であり一部に石灰化を認める (Fig. 4)。

血管造影；右下副腎動脈造影で、右下副腎動脈の腫瘍による圧迫・伸展を認め、一部に腫瘍濃染を認めるが、全体としては hypovascularity を呈した (Fig. 5)。

以上の結果より右側副腎腫瘍と考え、悪性の可能性もあり右副腎摘出術を施行した。手術所見では、右腎

上極に周囲組織との境界明瞭な腫瘍がありこれを摘出した。

摘出標本 (Fig. 6)：重量 56 g、大きさ $5 \times 4.5 \times 3.5$ cm、表面は赤褐色で平滑、弾性軟。腫瘍断面は、黄褐色の遺残した副腎が一部に認められ、腫瘍の中心部は脂肪壊死と凝血塊で占められていた。

病理組織学的所見 (Fig. 7)：正常構造を持つ副腎組織が一部に見られ、腫瘍組織には脂肪組織と造血細胞が混在しており、右副腎より発生した myelolipoma と診断した。

症例 2

患者：49歳、男子

初診：1984年7月23日

主訴：なし

既往歴：1983年十二指腸潰瘍、1984年4月胆石

家族歴：特記すべきことなし

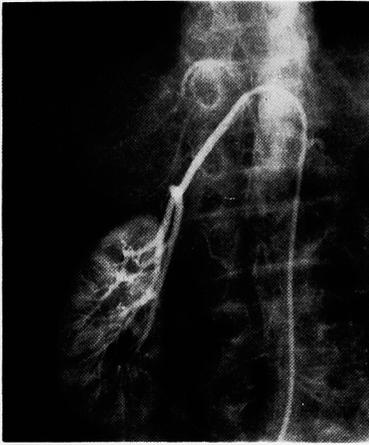


Fig. 5. Case 1. Right selective adrenal arteriogram shows inferior adrenal artery being stretched around hypovascular mass, part of which had irregular vessels.

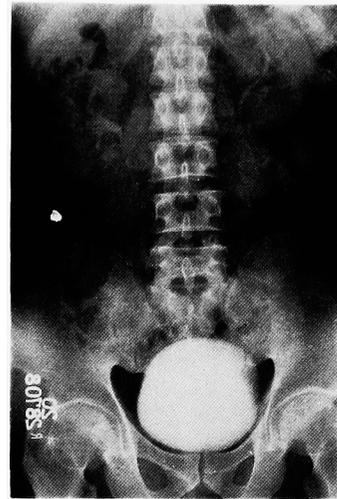


Fig. 8. Case 2. Intravenous pyelogram shows lateral displacement of the upper pole of the right kidney.



Fig. 6. Case 1. Cut surface shows encapsulated tumor with central necrosis and hemorrhagic area.

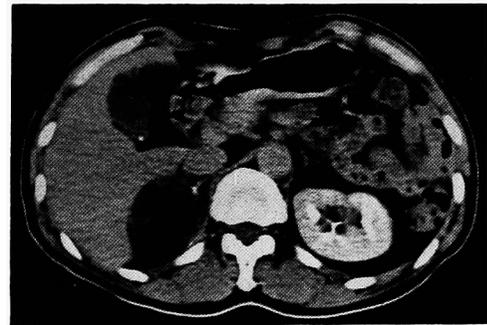


Fig. 9. CT scan of Case 2: The CT scan shows a low density mass above the right kidney.

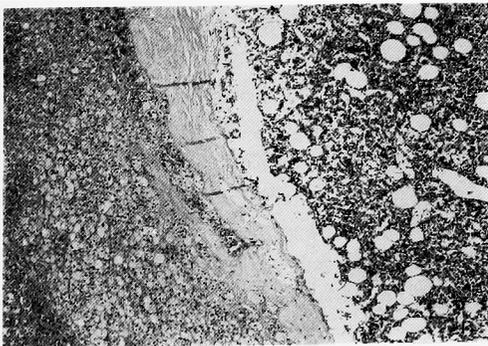


Fig. 7. Case 1. Photomicrography of tumor showing residual adrenal cortical tissue in right area. Tumor is made of fatty and hematopoietic tissue. (Hematoxylin and Eosin stain)

現病歴：1983年よりの十二指腸潰瘍精査中偶然腹部超音波検査で腹部腫瘍を指摘された。

入院時現症：身長 165 cm, 体重 57.5 kg, 胸部理学的所見に異常を認めず, 血圧 120/84 mmHg, 腹部触診では腫瘍を触知しない。

入院時検査成績：末梢血；RBC $502 \times 10^4/\text{mm}^3$, WBC $7,300/\text{mm}^3$, Hb 15.6 g/dl, Ht 47.1%, Plt $26.8 \times 10^4/\text{mm}^3$. 血液化学；T.P. 7.4 g/dl, GOT 13 IU/l, GPT 22 IU/l, LDH 261 IU/l, ChE 0.74 Δ pH, T. Bil 1.8 mg/dl, BUN 15.1 mg/dl, s-Cr 1.1 mg/dl, Na 140 mEq/l, K 3.8 mEq/l, Cl 105 mEq/l, Ca 4.5 mEq/l. ホルモン検査；s-Adrenaline 22 pg/ml, s-Noradrenaline 289 pg/ml, s-Aldosterone 160.8 pg/ml, s-Cortisol 15.4 $\mu\text{g}/\text{dl}$, u-Adrenaline 2.6 $\mu\text{g}/24\text{ h}$, u-Noradrenaline 73.8 $\mu\text{g}/24\text{ h}$, u-17O



Fig. 10. Selective right adrenal arteriogram of case 2: Branches of inferior adrenal artery are draped around mass.



Fig. 11. Case 2. Tumor is covered with thin translucent capsule.

HCS 3.7 $\mu\text{g}/24\text{ h}$, u-17KS 5.2 $\text{mg}/24\text{ h}$, u-VMA 4.1 $\text{mg}/24\text{ h}$. 検尿; 異常なし.

レ線学的検査:

排泄性腎盂造影; 右腎の下方への偏位を認める (Fig. 8).

腹部 CT; 右腎上方, 肝右葉下方に低吸収値の充実性腫瘍を認める (Fig. 9).

右下副腎動脈造影 (Fig. 10): 右下副腎動脈の圧迫・伸展を認め, 比較的血管に乏しい腫瘍陰影を認める.

以上より右副腎摘出術を施行. 腫瘍は周囲組織とは比較的容易に剝離できたが, 一部肝右葉と癒着していた.

摘出標本 (Fig. 11); 重量 47 g, 大きさ 5.5×5×

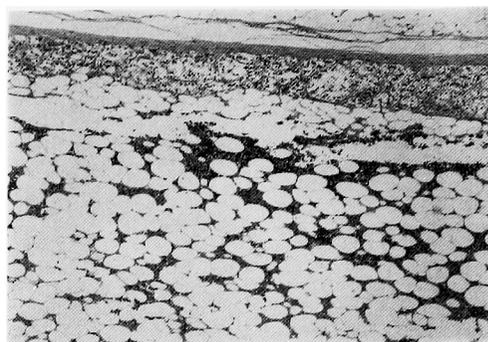


Fig. 12. Microscopic picture of case 2: The tumor is composed of hematopoietic and fatty tissue.

2.5 cm で, 表面は赤褐色で平滑, 弾性軟. 断面は黄色をおびた暗赤色の充実性腫瘍であった.

病理組織学的所見 (Fig. 12); 脂肪組織内に造血細胞を認め, 右副腎より発生した myelolipoma と診断した.

考 察

Myelolipoma は, 脂肪組織と各種の骨髄性細胞よりなる稀な悪性腫瘍で, 最も多く副腎に発生するが, 副腎以外にも後腹膜脂肪組織^{3,5)}, 後腹膜脂肪組織⁴⁾, 筋肉組織内⁵⁾に見られたという報告がある. しかしこれらは, 剖検時に偶然に発見されたものがほとんどで, 剖検時に本腫瘍が発見される頻度は0.2~0.8%とされている^{6,7)}.

本症の発生原因としては諸説があり, Collins⁸⁾ や Giffen⁹⁾ は, 1)血液を介しての骨髄細胞の塞栓による ectopia 説, 2)骨形成組織の胎生期遺残, 3)発生異常, 4)副腎皮質細胞の化生, という4つの仮説を想定しているが, いまだ結論はでない.

Dyckman and Freedman¹⁰⁾ が, 1957年に症状のある副腎 myelolipoma の外科的切除例を最初に報告したが, それ以来欧米では30例余の報告がある. 本邦では野内, 菅野¹¹⁾が1960年に報告した後, 自験例2例を含め25例の外科的切除の報告がある (Table 1)¹¹⁻³²⁾ 本邦での報告では, 年齢分布は20歳から76歳, 性別は男子18例, 女子7例と男子に多くみられ, 患側は右側18例, 左側6例, 両側1例と右側優位であり, 症状があり発見されたものの15例, 症状がなく偶然発見された, いわゆる "incidentaloma" が10例であった. 摘出重量は, 10~1,950 g 平均 656 g であり, 症状があつて摘出された場合は平均 1,026 g, 症状なく摘出されたものは平均 175 g であり, 摘出重量と症状には明らかな相関関係があると考えられる. 一般的には

Table 1. Surgically removed myelolipoma in Japan

No.	報告者	年齢	性	部位	症状	重量(g)	年度
1	野内	55	♂	左	(+)	500	1960
2	白坂	51	♀	右	(+)	1200	1975
3	当真	56	♀	左	(+)	1930	1978
4	塚口	41	♂	右	(+)	1700	1979
5	石川	20	♂	右	(+)	150	1981
6	金地	36	♂	右	(+)	1230	1982
7	櫻井	51	♂	右	(-)	430	1982
8	櫻村	36	♂	右	(+)	1230	1982
9	新井	56	♂	左	(+)	387	1983
10	飯塚	57	♂	左	(+)	不明	1983
11	佐藤	59	♂	右	(-)	50	1983
12	佐藤	33	♂	右	(-)	10	1983
13	中村	56	♀	右	(+)	不明	1983
14	渡辺	50	♂	右	(-)	480	1983
15	大友	52	♀	右	(-)	20	1984
16	上領	45	♂	両	(+)	右1950 左1219	1984
17	田中	50	♂	右	(+)	800	1985
18	金	37	♀	右	(-)	16	1985
19	雨宮	62	♀	右	(+)	420	1986
20	森山	43	♂	左	(+)	620	1986
21	寿美	47	♀	右	(+)	不明	1986
22	坂本	67	♂	左	(-)	60	1986
23	藤本	51	♂	右	(-)	580	1986
24	自験例	76	♂	右	(-)	56	1986
25	自験例	49	♂	右	(-)	47	1986

本腫瘍は無症状であり、内分泌異常を示すことはほとんどなく、性別、年齢分布にも特徴はないといわれている^{6,7,33,34}。自覚症状は腫瘍の増大や腫瘍内出血による腹痛、血尿、腹部腫瘍触知などであることが多い^{6,7,32,34}。

近年の画像診断の進歩により incidentally に副腎 myelolipoma が発見されることが多くなりつつある。KUB, DIVP では、腎上部に腫瘍陰影を見出し、腎の下方への圧迫像がみられる。CT 像では low density の腫瘍であることが多く、時に石灰化像をみることもある。myelolipoma は超音波上高い echogenicity を示すことが、他種副腎腫瘍に対し特徴的と言え、術前診断を下し得る可能性はこのあたりにある。血管造影では、良性腫瘍の所見のみで myelolipoma 診断には寄与しない^{6,35}。

従来、泌尿器科医は副腎腫瘍があれば摘出する傾向にあったが、このような画像診断の進歩に伴い副腎 myelolipoma が疑われ、症状がない時に、Gallis ら³⁶は、needle biopsy で診断を確定し得たなら、観血的治療を避け保存的に経過観察すれば良いと述べている。

結 語

Incidentally に発見された76歳男子、49歳男子の副腎 myelolipoma の2例を報告するとともに、本邦

外科的切除例25例を集計し若干の文献的考察を加えた。

なお本論文の要旨は、第117回日本泌尿器科学会関西地方会で口演した。

文 献

- Gierke E: Uber Knochen marksgewebe in der Nebenniere. Beitr Path Anat Suppl 17: 311, 1905
- Oberling C: Les formations myelolipomatueses. Bull Assoc Franc Cancer 18: 234, 1929
- Barten H: Uber das Vorkommen von Knochenmarksgewebe in den Nebennieren. Virchows Arch Path Anat 294: 139~146, 1935
- Pick L: Vber retropleurale tumorartige Heterotopie roten. Knochen marks Klin Wschr 7: 1712, 1928
- Herzenberg H: Zur Frage der Heterotopie des Knochen marks, Virchows Arch 239: 145, 1922
- Rubin HB, Hirose F and Benfield JR: Myelolipoma of the adrenal gland. Angiographic findings and review of the literature. Am J Surg 130: 354, 1975
- Symington T: Functional pathology of the human adrenal gland. Baltimore: The Williams & Wilkins Co., 1969
- Collins DC: Formation of bone marrow in suprarenal gland. Am J Pathol 8: 97~105, 1932
- Giffen HK: Myelolipoma of the adrenals: Report of seven cases. Am J Pathol 23: 613~625, 1947
- Dyckman J and Freedman D: Myelolipoma of the adrenal with clinical feature and surgical excision. J Mt Sinai Hosp 24: 793, 1957
- 野内文雄・菅野孝一: 副腎に発生した巨大な Myelolipoma の1例. 福島医学 10: 455~465, 1960
- 白坂祥三・樋口健二郎・佐々木大輔・ほか: Myasthenia gravis を伴った副腎原発の Myelolipoma の1例. 日内会誌 64: 283~284, 1975
- 当真嗣裕・斉藤 隆・ほか: いわゆる副腎 Myelolipoma の1手術例. 日泌尿会誌 69: 501, 1978
- 塚口 功・佐藤健司・ほか: 術前に診断し得た副腎 Myelolipoma の1例. 日医放射線会誌 39: 1128~1129, 1979
- Ishikawa H, Tachibana M, Hata M, et al: Myelolipoma of the adrenal gland. J Urol 126: 777~779, 1981
- 金地嘉春・塚塚正孝・ほか: 副腎 Myelolipoma の1例. ホルモンと臨床 30: 1101~1104, 1982

- 17) 櫻井賢二・野田正信・ほか：副腎骨髓脂肪腫，画像診断 Vol 2. No. 7: 571~574, 1982
- 18) 櫻村博正・ほか：超音波ガイド下穿刺吸収細胞診が有用であった adrenal myelolipoma の1例。日消病会誌 79: 1788, 1982
- 19) 新井 豊・朴 勺・小西 平・ほか 副腎 Myelolipoma の1例。日泌尿会誌 74: 278, 1983
- 20) 飯塚昭男・ほか：副腎ミエロリポーマの1例。日内会誌 72: 374, 1983
- 21) 佐藤郁郎・林 仁守・ほか：超音波検査が診断に有用であった adrenal myelolipoma の2例。超音波医学 10: 414, 1983
- 22) 中村広志・松谷正一・ほか：骨髓脂肪腫の1例。千医医学 59: 419~423, 1983
- 23) 渡辺千尋・斉藤 光：巨大右副腎腫瘍の1治験例。通信医学 9: 554, 1983
- 24) 大友 邦・松永 博・ほか：Adrenal Myelolipoma. 画像診断 4: 767~771, 1984
- 25) 上領頼啓・平尾 博・ほか：副腎 Myelolipoma の1例。臨泌 38: 417~420, 1984
- 26) 田中重人・梅田 優・ほか：副腎 Myelolipoma の1例。泌尿紀要 31: 1761~1766, 1985
- 27) 金 昌弘・細木 茂・ほか：副腎骨髓脂肪腫の1例。日泌尿会誌 76: 1262, 1985
- 28) 雨宮 裕・狩場岳夫・ほか：副腎骨髓脂肪腫の1例。日泌尿会誌 77: 1030, 1986
- 29) 森山信男・石井 創・ほか：Adrenal Myelolipoma の1例。日泌尿会誌 77: 1023, 1986
- 30) 寿美周平・石橋克夫・ほか：Adrenal Myelolipoma の1例。日泌尿会誌 77: 1012, 1986
- 31) 坂本善郎・小川由英・ほか：膀胱癌に合併し偶然発見された副腎 Myelolipoma の1例。日泌誌 77: 1012, 1986
- 32) 藤本 博・田中正敏・ほか：副腎 Myelolipoma の1例。日泌尿会誌 77: 695, 1986
- 33) Boudreaux D, Waisman J, Skinner DG and Low R: Giant adrenal myelolipoma and testicular interstitial cell tumor in a man with congenital α_1 -hydroxylase deficiency. Am J Surg Patho 3: 109, 1979
- 34) Gee WF, Chikos PM, Greares JP, Ikemoto N and Tremann JA: Adrenal myelolipoma. Urology 5: 562, 1975
- 35) Behan M, Martin EC, Mnecke EC, et al: Myelolipoma of the adrenal two cases with Ultrasound and CT findings. Am J Roentogenol 129: 993~996, 1977
- 36) Gallis L and Gaboard F: Adrenal myelolipoma of diagnosis by fine needle aspiration. J Urol 136: 655~657, 1986

(1987年1月13日受付)