

経腰的に摘除した巨大出血性副腎偽嚢腫の1例

竹内 康晴¹, 尾崎 由美¹, 須山 太助¹, 澤田 喜友¹
黒田加奈美¹, 中島 耕一¹, 大原関利章², 若山 恵³

¹東邦大学医療センター大橋病院泌尿器科, ²東邦大学医療センター大橋病院病理診断科

³東邦大学医療センター大森病院病理診断科

A CASE OF GIANT HEMORRHAGIC ADRENAL PSEUDOCYSTECTOMY WITH A FLANK INCISION

Yasuharu TAKEUCHI¹, Yumi OZAKI¹, Taisuke SUYAMA¹, Yoshitomo SAWADA¹,
Kanami KURODA¹, Kouichi NAKAJIMA¹, Toshiaki OHARASEKI² and Megumi WAKAYAMA³

¹The Department of Urology, Toho University Ohashi Medical Center

²The Department of Pathology, Toho University Ohashi Medical Center

³The Department of Pathology, Toho University Omori medical Center

The patient was a 43-year-old woman who underwent detailed examinations for a retroperitoneal cystic lesion that was incidentally found during orthopedic treatment. Although the tumor was a non-functioning tumor, and diagnostic imaging was negative for malignancy, the tumor was surgically resected with a flank incision. The histopathological diagnosis was adrenal pseudocyst.

(Hinyokika Kyo 57 : 315-318, 2011)

Key words : Adrenal cysts, Flank incision, Retroperitoneal approach

緒 言

副腎嚢腫は比較的稀な良性疾患である。近年画像診断の発達とともに偶発的に発見される機会が増えている。今回、われわれは他科の画像検査で偶然発見された巨大副腎出血性偽嚢腫を経腰的に切除した1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：43歳，女性

主訴：左後腹膜腔腫瘤精査

既往歴：髄膜炎（8歳）

現病歴：腰椎椎間板ヘルニアで整形外科加療中に施行したMRI検査で左後腹膜腔に約15cm大の嚢胞性病変が認められ精査加療目的で当科入院となる。

入院時現症：身長159cm，体重48kg，血圧120/66mmHg，脈拍72/分整。胸腹部平坦かつ軟，腫瘤は触知せず。

入院時検査成績：血算・生化学検査で異常なし。尿沈渣検査で白血球10～19/視野。尿細胞診検査class I，腫瘍マーカーCEA，CA19-9，AFPは正常範囲内であった。

内分泌学的検査：血清コルチゾール28.7μg/dl，ACTH69pg/mlと軽度上昇を示したが，血清アドレナリン，ノルアドレナリン，ドーパミン，アルドステロン，レニンはすべて正常値であった。また尿中アド

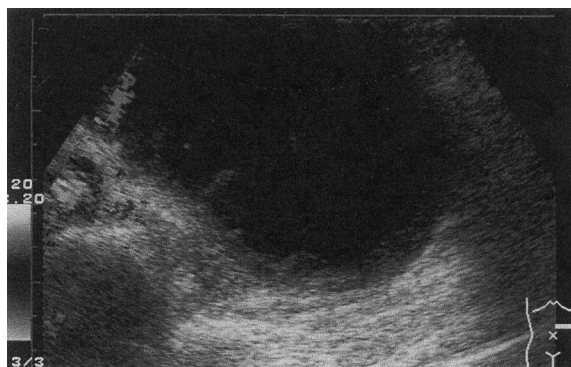


Fig. 1. On ultrasound, the inner wall of the tumor is rather irregular, and a small amount of blood flow is observed in the margin.

レナリン，ノルアドレナリン，ドーパミン，VMA，17-OHCS，17-KSはすべて正常値であった。

腹部超音波検査：直径15cm大の嚢胞性病変が認められ腎や脾臓とは異なる呼吸性移動を示した。カラードプラでは腫瘤辺縁に軽度の血流を認めた（Fig. 1）。

DIP検査：排泄性腎盂造影では左腎は上方より第4腰椎レベルに圧排されていた（Fig. 2A）。

腹部CT検査：左腎上方に直径15cm大の嚢胞性病変が認められ嚢胞壁の一部には石灰化が認められた（Fig. 2B）。

腹部MRI検査：左側腹部にT2強調画像で高信号を示す15×10×10cmほどの嚢胞性病変を認め造影

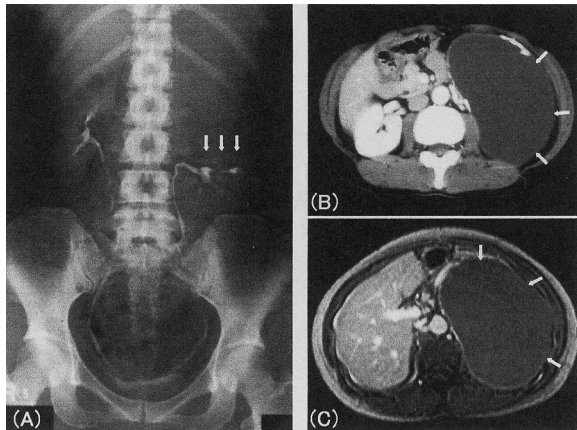


Fig. 2. A: On the DIP test, the left kidney is compressed superiorly. B: CT shows a uniformly enhancing cystic lesion with a partially calcified wall. C: MRI (T2-weighted image) shows a cystic lesion with a smooth margin and high signal intensity.

増強効果を辺縁のみに認めた。T1 強調画像で同部は低信号を示した (Fig. 2C)。

以上の検査所見より、左副腎嚢胞と診断し経腰的左副腎嚢腫摘除術を施行した。

手術所見：第12、11肋骨を切断し、腰部斜切開でアプローチした。嚢胞は周囲組織との癒着が比較的強く周囲組織から慎重に剥離し支持糸をかけ開窓し混濁の強い褐色粘稠性の内溶液を 1,050 ml 吸引した後 en bloc に摘除した。内溶液の細胞診は class I であった。嚢胞壁には肉眼的に黄色の副腎組織が確認できた。摘出標本は 22×13×3 cm 大の単房性嚢胞性病変で嚢胞壁の一部に石灰化がみとめられ、内面は粗造で褐色調のやわらかい物質が附着していた (Fig. 3A)。

病理組織学的所見：副腎実質に連続した一部に石灰化を伴う線維性壁を有する嚢胞状病変が認められた。内面を覆う上皮は認められず内腔にはコレステロール結晶を伴った無構造な沈着物や血液が認められた (Fig. 3B)。以上の所見より副腎偽嚢腫の診断となった。

考 察

副腎嚢腫は比較的稀な疾患ではあるが近年超音波、CT、MRI の画像診断の進歩と普及により副腎偶発腫と同様に発見の頻度は増えている。Kloos ら¹⁾によると副腎偶発腫の疫学は CT 検査で 0.35~4.36% であり、本邦における副腎偶発腫の病因としては上芝²⁾の 3,678 例の集計のうちホルモン非産生腫瘍が 50.8% と半数以上を占め、順にコルチゾール産生腫瘍 10.5%、褐色細胞腫 8.5%、不明 7.4%、アルドステロン産生腫瘍 5.1%、過形成 4%、悪性腫瘍転移 3.7%、骨髄脂肪腫 3.4%、嚢胞は 2.3% とされる。以下、神経節神経腫が 1.5%、副腎癌が 1.4% を占める。

副腎嚢腫の分類としては 1959 年に Abeshouse ら³⁾が組織発生を考慮し 155 例 (剖検例 88 例、手術例 67 例) をまとめ、1966 年に Foster ら⁴⁾がさらに症例を追加し 220 例 (剖検例 100、手術例 120 例) を組織学的に、1) 寄生虫性、2) 上皮性 (真性腺性 (貯留) 嚢胞、胎児性嚢胞、嚢胞性腺腫)、3) 内皮性 (リンパ管腫性嚢胞、血管性嚢胞)、4) 偽嚢腫性の 4 つに再分類したものが多く用いられ、近年 Neri ら⁵⁾が 515 例において比率を寄生虫性 2%、上皮性 6%、内皮性 24%、偽嚢腫性 56%、分類不能嚢胞 12% と報告しており、国内では寄生虫性は認められていないが酒井ら⁶⁾によるとほぼ同様の比率である。Neri らは偽嚢腫をさらに、出血性 37%、腺腫性 1%、褐色細胞腫性 4%、悪性腫瘍性 3%、分類不能 11% と示しており、副腎嚢腫全体のなかで出血性偽嚢腫がもっとも多い。

本症例は病理組織学的に嚢胞内面を覆う上皮はみられず偽嚢腫の診断に至った。偽嚢腫の成因として、Foster らは正常副腎組織もしくは腫瘍からの出血による二次的な変化としている。また偽嚢腫と報告されてきた症例のなかには血管由来と思われる内皮細胞が嚢胞内面に部分的に認められるものもあった⁷⁾。Gaffey ら⁸⁾は血管、リンパ管など脈管由来の嚢腫の内腔を

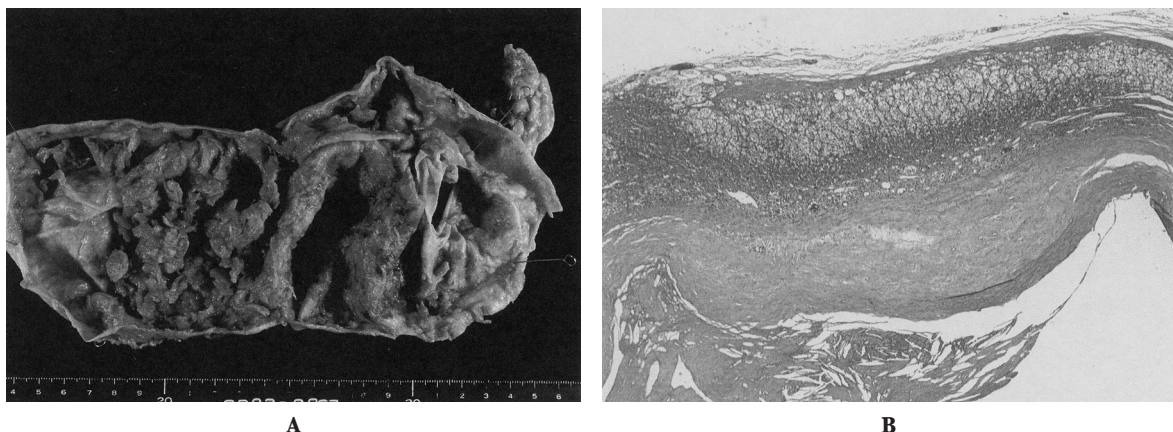


Fig. 3. A: A unilocular cystic lesion is observed, and it has a rough inner surface onto which soft, brown substances are attached. B: The histological image (×40) shows no epithelium covering the inner wall.

Table 1. Report of giant adrenal cyst in Japan

No	報告年	年齢	性別	局在	主訴	大きさ (cm)	治療	アプローチ法	病理診断	内壁	内部性状	内容液量
1 ¹²⁾	1984	36	男	R	腹痛	20×10×10	摘除	腰部斜切開	上皮性嚢腫	中皮細胞由来	軽度白濁	1,900 ml
2 ¹³⁾	1988	49	女	R	右側腹部圧迫感	18×15×22	摘除	不詳	偽嚢腫	認めず	暗褐色調混濁	不詳
3 ¹⁴⁾	1990	54	男	R	臍部腫瘍	18×12×26	摘除	肋弓下切開	上皮性嚢腫	上皮性細胞	赤ワイン色漿液性	3,000 ml
4 ¹⁵⁾	1992	43	女	R	上腹部膨満感	19×16×15	摘除	上腹部鉤状切開	内皮性嚢腫	内皮細胞わずかに(+)	漿液性透明黄色調	2,300 ml
5 ⁶⁾	2000	51	女	L	全身倦怠感	18×14.5×11	摘除	経腹的	偽嚢腫	認めず	暗褐色膿汁と凝血塊	不詳
6 ¹⁶⁾	2004	72	女	R	労作時呼吸苦	25	摘除	経胸経腹的	偽嚢腫	認めず	暗赤色	4,300 ml
7 ¹⁰⁾	2007	35	女	R	上腹部腫瘍	20	摘除	腹部正中切開	偽嚢腫	認めず	茶褐色	不詳
8 ¹⁷⁾	2008	77	女	L	左側腹部異和感	18×12	開窓洗浄	経腹的	偽嚢腫	認めず	茶褐色	不詳
9 ⁷⁾	2009	45	男	L	上腹部痛	17.5×12.4	摘除	逆T字切開	偽嚢腫	一部に血管内皮様細胞	灰色漿液性	1,000 ml
自験例	2010	43	女	L	偶発腫瘍	22×13×3	摘除	腰部斜切開	偽嚢腫	認めず	褐色粘稠性	1,050 ml

覆った内皮細胞が2次的変化をうけ破綻したものと推察している。1980年に Reid⁹⁾ が提唱した概念で慢性に経過して徐々に増大する血腫と定義される慢性進行性血腫は偽嚢腫と同一の病態と推察するものもあった¹⁰⁾。自験例は病理組織学的に偽嚢腫であり形態学的に慢性進行性血腫と判断したがその境界は明確でなく今後の研究課題としてさらなる症例の蓄積が望まれる。

副腎嚢腫は本邦で2000年までに230例以上の報告があるが¹¹⁾、そのうち嚢胞径が15 cm以上を越えるものは詳細な記載のあったもののうち諸角ら¹²⁾が報告した上皮性嚢腫の1例に土橋ら⁷⁾がまとめ報告した8例^{6,7,10,13-17)}を加えると本例が10例目となる (Table 1)。そのうち、上皮性嚢腫は2例、内皮性嚢腫は1例、偽嚢腫は7例あった。偽嚢腫内の性状は7例中6例が褐色調であり出血性偽嚢腫と考えられる。1例は内部の性状が灰色漿液性でありその1例のみに嚢腫内壁の一部に内皮細胞をみとめたことを考えると偽嚢腫の病態としてその多くをしめる出血性偽嚢腫は緩徐な進行性血腫による内皮細胞の破壊であるという推察の一助となるかもしれない。

症状としては通常は小さなサイズが多いため嚢胞内血腫の破裂や感染など二次的合併症がなければ無症状であることが多いが、15 cm以上の10症例においては6例が腹部症状を呈し1例は全身倦怠感、1例は呼吸苦と局所の圧迫症状の関与が認められ偶発的に発見された症例は自験例のみであった。原因として、腰椎椎間板ヘルニアによる疼痛により症状が隠されたものと考えられた。

副腎嚢腫の画像診断では超音波検査、CT、MRIが

有用である。CTでは境界明瞭な造影されない水濃度の腫瘍、MRIでは均一な高信号という通常の嚢胞パターンを示すとされる¹⁸⁾。

またCTで壁の一部に石灰化を認めることがあるが粗大な石灰化をしめすことが多い悪性腫瘍とくらべ卵殻状であり鑑別される⁴⁾。Wedmidら¹⁹⁾はCTでは出血性分の混在のため特に偽嚢腫において悪性腫瘍との鑑別が不可能かもしれないがMRIにおいてしばしばその違いを描出できるとしている。超音波検査は最も低侵襲で簡便に行える検査であり、内部は均一な水様をしめし嚢胞壁は比較的整で一部に石灰化や血流を認めることがある。

血清内分泌検査は、副腎嚢腫の4%が褐色細胞腫性で3%が悪性腫瘍性である⁵⁾ことより必須と思われるが、穿刺液による精査は悪性腫瘍細胞の播種の可能性を考慮されることが多く症例の蓄積は少ない。田島ら²⁰⁾によると副腎嚢腫はコルチゾール、アルドステロン、カテコラミンについていずれかが血清値より高値であるとしている。増田ら²¹⁾の集計では18症例中17例で血中レベルより高い嚢腫内溶液のコルチコロイド濃度を認めており、副腎嚢腫に特徴的で周囲副腎組織からの受動的拡散によるとしている。

治療方針として、鈴木ら²²⁾は副腎腫瘍のサイズにおいて増大傾向がなく3 cm以下であれば経過観察とし、嚢胞と診断したうえで無症状であれば手術適応は低いとしている。Wedmidら¹⁹⁾は内分泌的有機能性病変、画像上悪性疾患の可能性、もしくは良性疾患でも5 cm以上であれば外科的摘除としており術式については腹腔鏡下もしくはロボットでのアプローチによる早期の摘除をすすめている。低侵襲である腹腔鏡手術

は試みるべきであることは近年指摘されていることであるが Hallfeldt ら²³⁾は嚢腫が 8 cm 以上であるとき内視鏡アプローチはしばしば成功しないとしている。また穿刺ドレナージについて Tung ら²⁴⁾は再発する可能性が高く推奨できないとしている。本邦における 15 cm 以上の症例においては全症例開腹手術であった。到達経路として後腹膜アプローチとなった症例は10症例中本例を含めて3例のみであり巨大なサイズにより手術視野を広く保つために経腹膜アプローチが多かったものと推察される。腹膜外のみでの操作の利点として腸管の刺激による術後腸管麻痺が少ないと考えられること、後の腹腔内手術が容易であることが挙げられ²⁵⁾、本症例は後腹膜アプローチとした。また今回の手術において第11肋骨を切除するも第12肋骨がやや長く術野の展開が不十分であり追加切断としたが手術侵襲を考慮すると例外的な処置であった。本症例は画像検査で悪性疾患は否定的で圧迫症状も認められなかったが、患者の希望ならびに腫瘍のサイズにより将来的に局所圧迫症状や二次的合併症の発現もかんがみて開腹摘除術の施行となった。本例は開腹術時に開窓したのち一塊に嚢腫を摘除しえたことを考えると、今後は腫瘍のサイズが大きい場合でもドレナージを併用することにより腹腔鏡手術の適応がひろがってくるかもしれない。

結 語

今回、偶発的に発見され経腰的に摘除した巨大副腎偽嚢腫の1例を経験した。

文 献

- 1) Kloos RT, Gross MD, Francis IR, et al.: Incidentally discovered adrenal masses. *Endocr Rev* **16**: 460-484, 1995
- 2) 上芝 元: 本邦における副腎偶発腫の疫学. *Current Therapy* **27**: 31-35, 2009
- 3) Abeshuse GA, Golstein RB and Abeshouse BS: Adrenal cysts, review of the literature and report of three cases. *J Urol* **81**: 711-719, 1959
- 4) Foster DG: Adrenal cysts, review of literature and report of case. *Arch Surg* **92**: 131-143, 1966
- 5) Neri LM and Nance FC: Management of adrenal cyst. *Am Surg* **65**: 151-163, 1999
- 6) 酒井康之, 山田拓己, 長浜克志, ほか: 感染を伴った巨大な出血性副腎嚢胞の1例. *泌尿紀要* **46**: 315-317, 2000
- 7) 土橋洋史, 塩見尚礼, 仲 成幸, ほか: 非機能性巨大副腎嚢胞の1例. *日臨外会誌* **70**: 2823-2827, 2009
- 8) Gaffey MJ, Mills SE, Fechner R, et al.: Vascular adrenal cysts: a clinicopathologic and immunohistochemical study of endothelial and hemorrhagic (Pseudocystic) variants. *Am J Surg Pathol* **13**: 740-747, 1989
- 9) Reid JD, Kommareddi S, Lanckerani M, et al.: Chronic Expanding Hematoma, a clinicopathologic entity. *JAMA* **244**: 2441-2442, 1980
- 10) 皆川倫範, 西澤秀治, 中山 剛, ほか: 副腎偽嚢胞の1例. *泌尿紀要* **53**: 107-112, 2007
- 11) Tanuma Y, Kimura M and Sakai S: Adrenal cyst: a review of the Japanese literature and report of a case. *Int J Urol* **8**: 500-503, 2001
- 12) 諸角誠人, 高橋茂樹, 宮崎尚文, ほか: 副腎嚢腫の1例. *泌尿紀要* **30**: 907-911, 1984
- 13) 池田 純, 楨殿 敦, 吉本喜一郎, ほか: 巨大副腎嚢腫の1例. *広島医* **41**: 1558-1561, 1988
- 14) 佐々木明, 岩藤浩典, 後藤精俊, ほか: 巨大副腎嚢胞の1治験例. *日臨外会誌* **51**: 594-598, 1990
- 15) 出口久次, 小澤哲郎, 北原信三, ほか: 巨大副腎嚢胞の1例. *日臨外会誌* **53**: 442-446, 1992
- 16) 森 直樹, 野間雅倫, 原 恒男, ほか: 呼吸困難を来した副腎嚢腫の1例. *西日泌尿* **66**: 15-17, 2004
- 17) 宮前公一, 木谷公亮, 宮本健次, ほか: 感染を伴った出血性副腎嚢胞の1例. *西日泌尿* **70**: 378-381, 2008
- 18) 後閑武彦, 高谷 周, 西城 誠, ほか: 副腎嚢腫の鑑別診断. マルチモダリティによる. *Abdom Imaging* **2008**, 63-66, 2008
- 19) Wedmid A and Palese M: Diagnosis and treatment of the adrenal cyst. *Curr Urol Rep* **11**: 44-50, 2010
- 20) 田島政晴, 黒田加奈美, 松島正浩, ほか: 副腎嚢腫の1例. *泌尿器外科* **2**: 283-287, 1989
- 21) 増田秀作, 森岡政明, 小松文都, ほか: 副腎嚢腫の1例. *泌尿器外科* **6**: 1249-1252, 1993
- 22) 鈴木 誠, 蓑和田 滋, 篠原 充, ほか: 増大傾向を示した副腎嚢腫. *臨泌* **44**: 1071-1073, 1990
- 23) Hallfeldt KK, Mussack T, Trupka A, et al.: Laparoscopic lateral adrenalectomy versus open posterior adrenalectomy for the treatment of benign adrenal tumors. *Surg Endosc* **17**: 264-267, 2003
- 24) Tung GA, Pfister RC, Papanicolaou N, et al.: Adrenal cysts: imaging and percutaneous aspiration. *Radiology* **173**: 107-110, 1989
- 25) 日浦義仁, 河 源, 田中朋子, ほか: 腹腔鏡下根治的腎摘除術60例の検討. *Jpn J Endourol ESWL* **19**: 76-81, 2006

(Received on November 1, 2010)
(Accepted on March 4, 2011)