

副腎悪性腫瘍と鑑別困難であった副腎血管腫性内皮嚢胞の1例

橋 進彰¹, 伊丹 祥隆¹, 飯田 孝太¹橋村 正哉¹, 細川 幸成¹, 藤本 清秀²¹多根総合病院泌尿器科, ²奈良県立医科大学泌尿器科学教室ADRENAL HEMANGIOMATOUS ENDOTHELIAL CYST THAT
WAS DIFFICULT TO DIFFERENTIATE FROM ADRENAL
MALIGNANT TUMOR: A CASE REPORTAkira TACHIBANA¹, Yoshitaka ITAMI¹, Kota IIDA¹,
Masaya HASHIMURA¹, Yukinari HOSOKAWA¹ and Kiyohide FUJIMOTO²¹The Department of Urology, Tane General Hospital²The Department of Urology, Nara Medical University

A 65-year-old woman was referred to our hospital for fever and diagnosed with pyelonephritis. Abdominal computed tomography showed a right adrenal tumor incidentally, that was 6.5 cm in diameter. We could not rule out malignant disease by magnetic resonance imaging examination and performed resection of the right adrenal tumor. The histopathological examination revealed an adrenal hemangiomas endothelial cyst, and there was no evidence of malignancy. It was difficult to differentiate between adrenal cyst and adrenal cancer in preoperative diagnostic imaging because the tumor contained hemorrhage and necrotic tissue.

(Hinyokika Kiyō 69 : 243-247, 2023 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_69_9_243)

Key words: Adrenal tumor, Adrenal hemangiomas endothelial cyst

緒 言

近年, 超音波検査, CT, MRI などの画像診断の進歩に伴い, 健康診断や他の疾患の精査過程で副腎腫瘍が偶然発見される機会が増えており, このような腫瘍を副腎偶発腫瘍という¹⁾. CT で検出された副腎偶発腫瘍の有病率は, 1.9~2.3%と報告されている²⁻⁴⁾. 本邦における副腎偶発腫3,672例の調査では, 50.8%が内分泌非活性副腎腫瘍であった⁵⁾. 内分泌非活性であっても, 悪性を示唆する画像所見を有する腫瘍, および腫瘍径が4 cm以上の腫瘍であれば, 手術適応とされる⁶⁾.

今回われわれは, 熱源精査目的に撮像した腹部単純CTで副腎偶発腫瘍を認め, 副腎摘除術を施行し, 副腎血管腫性内皮嚢胞と診断した1例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する.

症 例

患者: 65歳, 女性

主 訴: 右副腎腫瘍精査

既往歴: 高血圧, 喘息, 腰椎椎間板ヘルニア, 十二指腸潰瘍, 卵巣嚢腫術後, 虫垂炎術後, 子宮筋腫術後

現病歴: 2019年12月に発熱のため当院内科外来を受診し, 検尿や血液検査, 胸腹部単純CTの結果, 急性腎盂腎炎と診断された. 腎盂腎炎は抗生剤加療にて改

善したが, 受診時の腹部単純CTで偶発的に右副腎腫瘍を指摘され, 2020年1月に精査加療目的に当科を紹介受診となった.

初診時現症: 身長150 cm, 体重64 kg, 血圧124/80 mmHg

血液検査所見: WBC 7,900/ μ l, RBC 461万/ μ l, Hb 12.5 g/dl, PLT 39.7万/ μ l, AST 21 U/l, ALT 36 U/l, LDH 205 U/l, Cre 0.6 mg/dl, BUN 23.6 mg/dl, Na 142 mEq/l, K 3.8 mEq/l, Ca 8.9 mg/dl, CRP 0.78 mg/dl, アルドステロン 89.4 pg/dl (正常値: 29.9~158.8 pg/dl), コルチゾール 11.2 μ g/dl (正常値: 4.5~21.1 μ g/dl), アドレナリン 0.02 ng/ml (正常値: 0.1 ng/ml以下), ノルアドレナリン 0.34 ng/ml (正常値: 0.1~0.5 ng/ml), ドーパミン $\leq$ 0.01 (正常値: 0.03以下), ACTH 5.2 pg/ml (正常値: 7.2~63.3 pg/ml)蓄尿検査所見: アドレナリン 10.4 μ g/日 (正常値: 3~41 μ g/日), ノルアドレナリン 140 μ g/日 (正常値: 31~160 μ g/日), ドーパミン 645.4 μ g/日 (正常値: 280~1,100 μ g/日), メタネフリン 0.08 mg/日 (正常値: 0.04~0.18 mg/日), ノルメタネフリン 0.28 mg/日 (正常値: 0.1~0.28 mg/日), バニリルマンデル酸 2.59 mg/日 (正常値: 1.5~4.9 mg/日)

画像検査所見: 腹部単純CTでは, 右副腎に内部不均一な長径6.5 cmの腫瘍を認めた (Fig. 1A). 右副腎



A



B

Fig. 1. Computed tomography showed a right adrenal tumor (size 6.5 cm) in 2019 (A). The right adrenal tumor was 3.0 cm in diameter in 2013 (B).

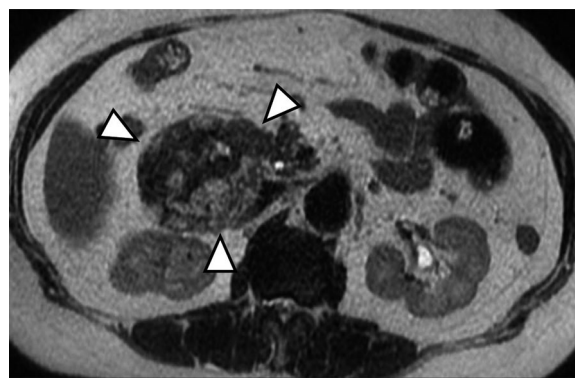
腫瘍は2013年の腹部単純 CT では長径 3.0 cm であり (Fig. 1B), 経時的に増大していた。腹部単純 MRI では、同部位は T2 強調画像で高信号と低信号が混在しており (Fig. 2A), 拡散強調画像で内部不均一な腫瘍を認めた (Fig. 2B)。

以上の血液生化学検査, 内分泌検査, 画像所見より, 内分泌非活性副腎悪性腫瘍の可能性が高いと診断し, 手術の方針とした。

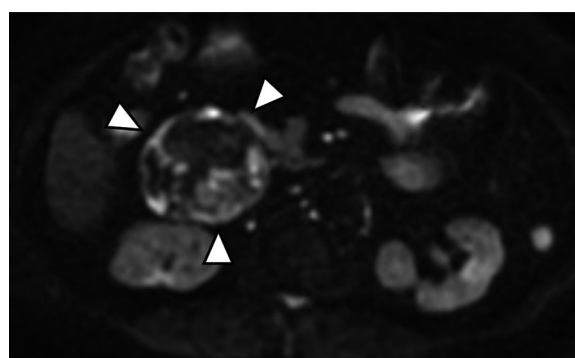
手術所見: 左下側臥位, 経腹膜到達法にて腹腔鏡下右副腎摘除術を開始した。腫瘍は肝臓や下大静脈との癒着が強く, 剥離に難渋したため開腹手術に移行した。体位を仰臥位に変更し, Chevron 切開にて腫瘍を摘出した。手術時間は5時間6分, 出血量は900 ml であり, 赤血球2単位輸血を要した。

摘除標本所見: 摘除標本は 7.0×6.9 cm 大, 重量は 116 g であった。正常副腎は腫瘍に圧排され, 腫瘍内部は出血成分および壊死組織が大半を占め, 一部に線維組織を認めた (Fig. 3)。

病理組織学的所見: 線維組織内には, 多房性の血管腔が嚢胞状となって見られた (Fig. 4A)。正常副腎は組織学的に異常を認めなかった (Fig. 4B)。また, 線維組織において血管内皮マーカーである CD34,



A



B

Fig. 2. Magnetic resonance imaging showed a heterogeneous right adrenal tumor (arrow head) by T2-weighted images (A) and diffusion-weighted images (B).

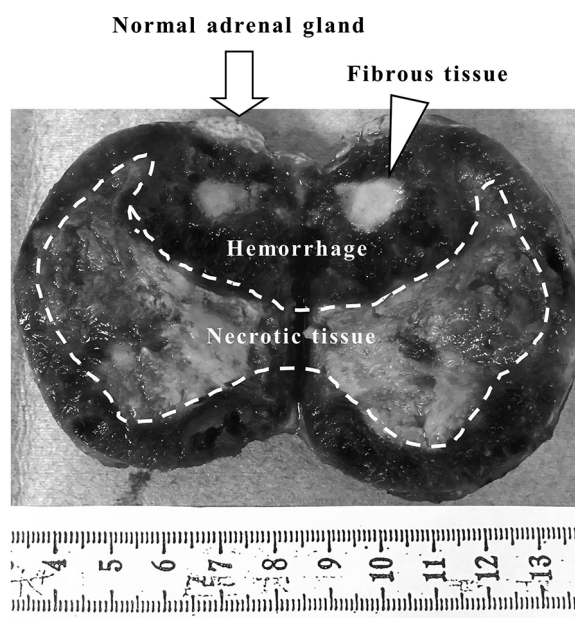


Fig. 3. The normal adrenal gland was pressed by the tumor (arrow). Hemorrhage, necrotic tissue and fibrous tissue (arrow head) were found in the tumor.

Factor VIII が陽性であり, 副腎血管腫性内皮嚢胞と診断した (Fig. 4C, D)。

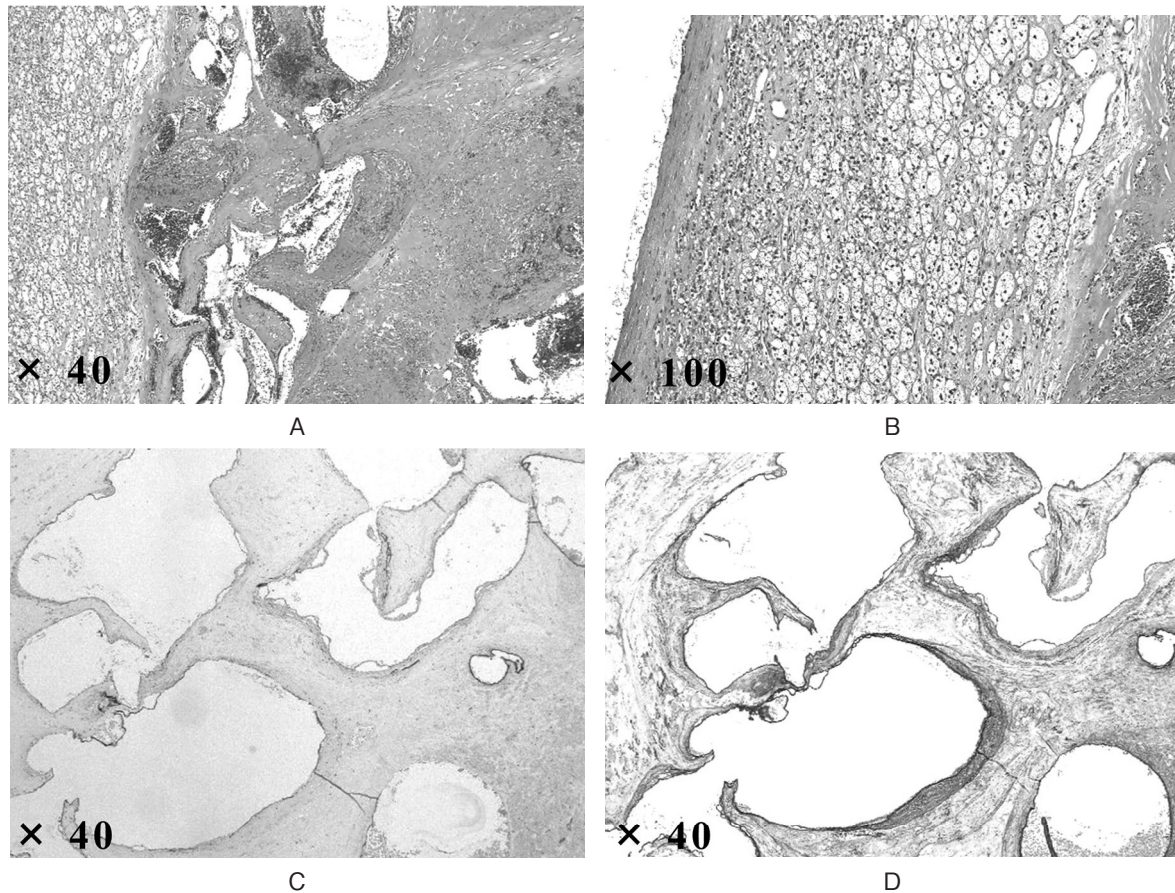


Fig. 4. HE staining revealed the vascular cyst around fibrous tissue (A). The adrenal parenchyma was normal without any evidence of malignancy (B). The tumor is positive for CD34 (C) and Factor VIII (D) protein by immunohistochemistry.

術後経過: 術後は貧血の進行や合併症なく経過し, 術後13日目に自宅退院となった。術後2年7カ月が経過し, 再発なく経過している。

考 察

副腎嚢胞性疾患は稀な疾患であり, 副腎偶発腫瘍3,239例の検討では, 2.3%に認めたと報告されている⁷⁾。副腎嚢胞性疾患の組織型は, 偽嚢胞, 内皮性嚢胞, 上皮性嚢胞, 寄生虫性嚢胞に分類され, 内皮性嚢胞はさらにリンパ管腫性, 血管腫性に分類される⁸⁾。発生頻度はそれぞれ, 内皮性嚢胞が45% (リンパ管腫性42%, 血管腫性3%), 偽嚢胞が39%, 上皮性嚢胞が9%, 寄生虫性嚢胞が7%と報告されている⁸⁾。

副腎血管腫性内皮嚢胞の病理学的特徴は, 嚢胞壁に内皮の形成を認めることである。また, 免疫組織化学染色にて血管腫性内皮嚢胞では CD31, CD34, Factor VIII が陽性となり, リンパ管腫性内皮嚢胞では D2-40 が陽性となり, 鑑別に有用なマーカーとして利用されている^{9,10)}。本症例においても, 線維組織内で CD34 および Factor VIII が陽性であったため, 血管腫性内皮嚢胞の診断に至った。

副腎嚢胞は, 超音波検査で薄い壁を有する内部均一

な液体病変として描出され, CT や MRI でも他臓器に発生する嚢胞と同様な像を呈する¹¹⁾。しかし, 嚢胞内に出血を伴う場合, ヘモグロビンが経時的にヘモジデリンに変化していく過程で, 多様な画像となるため鑑別診断は容易ではない¹¹⁾。Sacerdote らは, 副腎血腫が急性期, 亜急性期, 慢性期と経過するにつれて, ヘモグロビンの形態がデオキシヘモグロビン, メトヘモグロビン, ヘモジデリンへと変化するため, MRI 画像所見がそれぞれ変化していくことを報告している¹²⁾。MRI はそれぞれ, 急性期では T2 強調画像で低信号, 亜急性期では T1 強調画像および T2 強調画像で高信号, 慢性期では辺縁低信号となる。本症例では, 辺縁は低信号で, 内部に壊死を伴っているため血腫は慢性期と考えられる。一般的に, 副腎皮質癌では, 単純 CT にて出血, 壊死などのため内部が不均一となり, 低～高吸収域が混在した所見を呈する¹³⁾。MRI では T2 強調像で高信号が特徴的な所見であるが, 不均一な強度を示すことが多い。本症例では, 副腎腫瘍内部に出血や壊死を伴っており, MRI で典型的な嚢胞と画像所見が異なり, 悪性腫瘍との鑑別が困難であった。

副腎嚢胞は約7%に悪性またはその疑いがあると報

Table. Japanese cases of adrenal hemangiomatous endothelial cyst

Study	Age	Sex	Location	Tumor diameter	Cause of diagnosis	Reason of treatment	Method of operation
Deguchi 1992	43	Female	Right	19 cm	Abdominal bloating	Pressure to other organs	Open surgery
Hamasaki 2013	73	Female	Left	2.2 cm	Follow-up of ovarian cancer	Suspicion of malignancy	Laparoscopic surgery
Araki 2019	39	Female	Left	21 cm	Pregnancy	Bleeding of tumor	Laparoscopic surgery
Okada 2021	70	Male	Left	18 cm	Anemia	Bleeding of tumor	Open surgery
Our case	65	Female	Right	6.5 cm	Incidental	Suspicion of malignancy	Laparoscopic surgery Open conversion

告されている¹⁴⁾。副腎嚢胞の手術適応は、6 cm を超える症例や、出血リスクのある症例、機能性病変である症例、有症状例などが挙げられる¹⁵⁾。また、副腎皮質癌では1年あたり2 cm 以上増大すると報告されている¹⁶⁾。本症例では、約6年間で腫瘍径が3.5 cm 増大しており、過去の報告と比較して緩徐ではあったが、腫瘍径が6 cm を超えたため、悪性腫瘍の可能性を考慮して手術を行った。

本邦における、副腎血管腫性内皮嚢胞についての報告は、自験例を含め5例であった (Table)¹⁷⁻²⁰⁾。手術に至った理由として、他臓器への圧排が1例、悪性腫瘍疑いが2例、腫瘍からの出血が2例であった。手術方法は開腹手術が3例、腹腔鏡手術が2例であり、腫瘍の最大径が21 cm と比較的大きな症例でも腹腔鏡手術が可能であった¹⁹⁾。手術所見について、腫瘍と周囲組織との癒着が軽度であったものが1例¹⁸⁾、本症例のように高度であったものが1例であった¹⁹⁾。一般的な副腎腫瘍の場合は腹腔鏡手術による副腎摘除術が標準術式となっているが、副腎皮質癌と考えられる場合は開放手術を選択した方がよいとされている¹³⁾。しかし、開放手術と腹腔鏡手術との間に有意な治療成績の差を認めないとする報告もあり²¹⁾、本症例ではまず腹腔鏡手術を開始した。また、本症例では術前に副腎嚢胞と診断することは困難であったが、画像検査で副腎嚢胞と診断可能な症例においても、嚢胞増大による症状出現や、嚢胞内出血による貧血などが起こる可能性を念頭に入れ、経過観察を行い、腫瘍径が6 cm 以上や症状を伴う場合は副腎摘除についても考慮すべきである。

結 語

偶発的に発見され、画像検査で副腎悪性腫瘍と鑑別困難であった副腎血管腫性内皮嚢胞の1例を経験した。副腎嚢胞において、悪性所見や症状の有無を考慮して手術適応を判断することが重要である。

本論文の要旨は、第251回日本泌尿科学会関西地方会にお

いて発表した。

文 献

- 1) 柳瀬敏彦：副腎偶発腫瘍の鑑別診断と治療。日内会誌 **103**：650-656, 2014
- 2) Davenport E, Lang Ping Nam P, Wilson M, et al.: Adrenal incidentalomas: management in British district general hospitals. *Postgrad Med J* **90**: 365-369, 2014
- 3) Maher DI, Williams E, Grodski S, et al.: Adrenal incidentaloma follow-up is influenced by patients, radiologic, and medical provider factors: a review of 804 cases. *Surgery* **164**: 1360-1365, 2018
- 4) Taya M, Paroder V, Bellin E, et al.: The relationship between adrenal incidentalomas and mortality risk. *Eur Radiol* **29**: 6245-6255, 2019
- 5) Ichijo T, Ueshiba H, Nawata H, et al.: A nationwide survey of adrenal incidentalomas in Japan: the first report of clinical and epidemiological features. *Endocr J* **67**: 141-152, 2020
- 6) 内分泌非活性副腎腫瘍診療ガイドライン。日本泌尿科学会, 日本内分泌外科学会編, pp 60-62, メディカルレビュー社, 大阪, 2022
- 7) 上芝 元：本邦における副腎偶発腫の疫学。 *Current Therapy* **27**: 31-35, 2009
- 8) Foster DG: Adrenal cyst, review of literature and report of case. *Arch Surg* **92**: 131-143, 1966
- 9) Nigawara T, Sakihara S, Kageyama K, et al.: Endothelial cyst of the adrenal gland associated with adrenocortical adenoma: preoperative images simulate carcinoma. *Intern Med* **48**: 235-240, 2009
- 10) Carvounis E, Marinis A, Arkadopoulos N, et al.: Vascular adrenal cysts: a brief review of the literature. *Arch Pathol Lab Med* **130**: 1722-1724, 2006
- 11) 三井要造, 井上圭太, 小原千明, ほか：嚢胞内出血を伴った True adrenal cyst の1例。 *西日泌尿* **74**: 699-703, 2012
- 12) Sacerdote MG, Johnson PT and Fishman EK: CT of the adrenal gland: the many faces of adrenal hemorrhage. *Emerg Radiol* **19**: 53-60, 2012
- 13) 副腎腫瘍取扱い規約。日本泌尿科学会, 日本病理学会, 日本医学放射線学会, 日本内分泌学会, 日

- 本内分泌外科学会編, 第3版, pp 51-60, 金原出版, 東京, 2015
- 14) Neri LM and Nance FC : Management of adrenal cyst. *Am Surg* **65** : 151-163, 1999
- 15) Wu MJ, Shih MH, Chen CL, et al. : A 15-year change of an adrenal endothelial cyst. *Am J Case Rep* **23** : e935053, 2022
- 16) Young WF Jr : The incidentally discovered adrenal mass. *N Engl J Med* **356** : 601-610, 2007
- 17) 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
- 18) 武内照生, 濱崎隆志, 濱砂良一, ほか : 副腎血管腫性内皮嚢胞の1例. *西日泌尿* **75** : 95-98, 2013
- 19) 荒木杏平, 計屋知彰, 志田洋平, ほか : 妊娠を契機に発見され, 後に出血を来した巨大副腎血管腫性内皮嚢胞の1例. *泌尿紀要* **65** : 7-11, 2019
- 20) 岡田 薫, 原 康之, 臼田昌広, ほか : 貧血を契機に発見された副腎血管腫性内皮嚢胞の1例. *日臨外会誌* **82** : 1912-1918, 2021
- 21) Lombardi CP, Raffaelli M, Crea CD, et al. : Open versus endoscopic adrenalectomy in the treatment of localized (stage I/II) adrenocortical carcinoma : results of a multiinstitutional Italian survey. *Surgery* **152** : 1158-1164, 2012

(Received on December 15, 2022)

(Accepted on March 13, 2023)