

副腎骨髄脂肪腫の1例

岐阜大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 河田幸道教授)

小口 健一*, 長谷 行洋, 篠田 育男, 竹内 敏視
栗山 学, 兼松 稔, 坂 義人, 河田 幸道

A CASE OF ADRENAL MYELOLIPOMA

Ken-ichi Oguchi, Yukihiro Nagatani, Ikuo Shinoda,
Toshimi Takeuchi, Manabu Kuriyama, Minoru Kanematsu,
Yoshito Ban and Yukimichi Kawada

From the Department of Urology, Gifu University School of Medicine

A case of myelolipoma of the right adrenal gland is reported. A 43-year-old female was admitted to our hospital, Department of 1st Internal Medicine, because of acute hepatitis. CT incidentally showed a well circumscribed mass, as an area of low density, arising from the right adrenal gland. Although sonography showed a markedly echogenic tumor, it was not visualized on the angiogram. Results of hormonal examinations were unremarkable except for low levels of ACTH. We confirmed a myelolipoma of the right adrenal gland, and performed right adrenalectomy. The tumor was 65×50×35 mm in size, 95 g in weight. Pathology disclosed an admixture of mature adipose tissue and hematopoietic elements resembling bone marrow.

(Acta Urol. Jpn. 37: 55-58, 1991)

Key words: Adrenal tumor, Myelolipoma

緒 言

副腎骨髄脂肪腫は稀な疾患とされ、従来そのほとんどが剖検時に発見されたものであったが、ここ数年画像診断により偶然発見される機会が多くなりつつある。われわれも最近その1例を経験したので報告し、文献的考察を加えた。

症 例

患者: 43歳, 女性, 主婦

初診: 1988年4月6日

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 40歳時より高血圧症にて薬物治療中。

現病歴: 1988年3月1日より発熱および黄疸が出現し、急性A型肝炎と診断され3月11日当院第1内科に入院した。経過中CTにて肝右葉下面に径5cm大の円形低吸収域の存在を指摘され、副腎腫瘍の疑いになり5月26日当科転床となった。

入院時現症: 身長 151 cm, 体重 73.5 kg. 心拍数

84/min, 血圧 150/90 mmHg. 腹部は著明な肥満にて、肝、腎その他腫瘍を触知しえなかった。

入院時検査成績: GOT 34 IU/l, GPT 40 IU/l, ChE 0.44 U/l, ZTT 17.5 KU, TTT 12.0 MU の軽度肝機能異常と、空腹時血糖 115 mg/dl, 食後2時間血糖 223 mg/dl の耐糖能異常を認めた以外に、血液生化学一般検査に特筆すべきことはなかった。腫瘍マーカーでは CEA, AFP, IAP, CA19-9 などすべて正常範囲内であった。また内分泌学的検査においては血液にて ACTH 23 pg/ml (正常値 30~60) と低下, aldosterone 135.7 ng/ml (臥位正常値 11~63) と上昇を認めたが, cortisol, noradrenaline, adrenaline, PRA などは正常範囲内にあった。尿においても 17 KS, 17 OHCS, aldosterone の一日排泄量に異常を認めなかった。

画像診断ではCTにて右副腎に一致した 51×42 mm, H.F. 値 -91.8 の円形低吸収域を認めた (Fig 1) が, enhanced CT では増強効果はみられなかった。超音波断層法により同種腫瘍は均一な高エコー領域として描出された。また動脈造影では腫瘍性血管は認められず、下副腎動脈の下方への圧排をみるのみであ

* 現: 岐阜市民病院泌尿器科

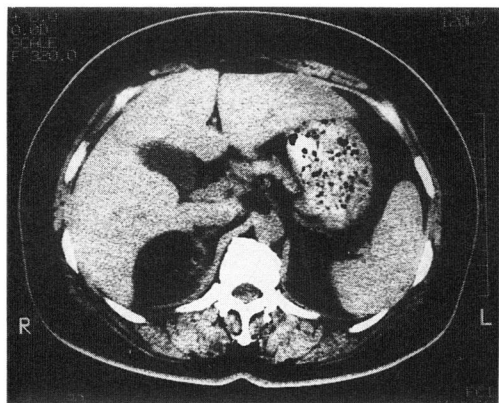


Fig. 1. Plain CT shows a well-defined tumor arising from the right adrenal gland.

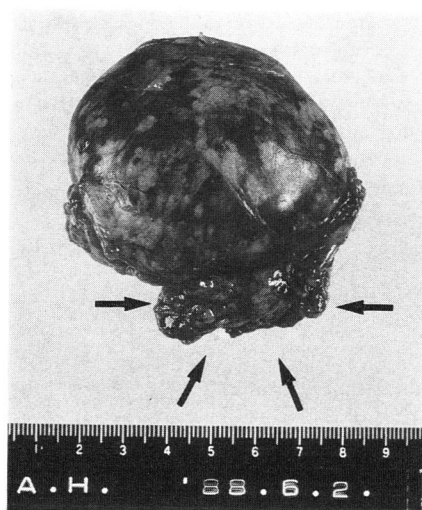


Fig. 2. Macroscopic appearance of the tumor. Spared adrenal gland is showed with arrows.

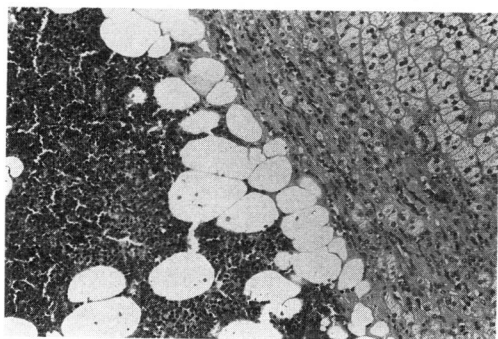


Fig. 3. Microscopic appearance of the tumor. The normal adrenal cortex is seen in the right half (H.E. $\times 100$).

った。副腎シンチグラフィー (^{131}I -adosterol) では腫瘍部位は cold であり、同側副腎も圧排によるためか取り込みは低下していた。

経過：以上の所見により右副腎骨髄脂肪腫と診断し同年6月2日、腰部斜切開にて右副腎摘出術を施行した。肝、腎と腫瘍との境界は明瞭で、残存する副腎は内側に圧排されており、これを一塊として摘出した。

摘出標本は $65 \times 50 \times 35 \text{ mm}$, 95 g, 黄褐色、弾性軟の球形で、断面は薄い被膜に覆われた暗赤黄色の充実性腫瘍であった (Fig. 2)。病理組織学的には脂肪組織と骨髄に似た造血組織からなり、副腎骨髄脂肪腫と診断された (Fig. 3)。

術後の経過は順調であり15日目に退院となった。血圧は収縮期圧にて約 20 mmHg 低下した。また aldosterone は術後10日目に 30 pg/ml と低下し、ACTH は 61 pg/ml と上昇した。

考 察

副腎骨髄脂肪腫の成因は現在も不明な点が多い。しかし、画像診断技術の飛躍的な向上と人間ドックの普及により無症状での発見率が高まったことから、ここ数年報告例が相次いでいる。

過去の報告例について検討してみると本邦では三宅ら¹⁾による43例の切除例の集計があり、さらにわれわれが調べた10例²⁻¹⁰⁾を加えると本症例が54例目にあたる。性別では男子31例に対し女子23例、年齢構成は20歳から76歳までであり、男女とも50歳代に最も多くみられる。左右差では左側13例に対し右側40例と圧倒的に右側に多い。また両側発生例も1例報告がある (Table 1)。腫瘍重量は 10 g から 1,950 g にわたるが、500 g 以下のものが37例 (77%) と多い。腫瘍重量の記載されていた48例について、発見のきっかけとなった随伴症状 (疼痛、腫瘤触知など) の有無と腫瘍重量との相関性をみると、無症状にて発見された30例中28例 (93%) が 500 g 以下のものであり、逆に 100

Table 1. Age, sex and laterality of the tumor (54 cases).

Age	Sex and Site		Male		Female		Total
	Bilat.	Left	Right	Bilat.	Left	Right	
20-29			1				1
30-39		2	4		1	2	9
40-49	1	1	4			4	10
50-59		3	12		3	5	23
60-69		1	1		1	4	7
70-79			1		1	2	4
Total	1	7	23		6	17	54

Table 2. Relationship of tumor weight and symptoms (48 cases)

Weight (g)	Symptoms		Total
	(+)	(-)	
≤100	1	18	19
101-500	8	10	18
501-1000	4	2	6
1001-1500	3		3
≥1500	2		2
Total	18	30	48

g 以下の小さい腫瘍19例のうち18例 (95%) が無症状で発見されたものである (Table 2). この傾向は最近特に顕著であり, また今後もしいわゆる incidentaloma として発見される症例が増えていくものと思われる.

診断には CT および超音波断層法の併用が極めて有用であり, これらのみで本疾患を疑うことは容易である. 1980年以後に本邦で報告された50例について検討すると, CT は48例に, また超音波断層法は43例に施行されていた. 術前診断としての正診率は, 記載のあった39例中24例 (針生検3例を含む) であり, その他の診断として副腎 (内分泌非活性) 腫瘍8例, 脂肪肉腫2例, 副腎腫瘍 (クッシング症候群) 1例, 副腎脂肪腫1例, 後腹膜腫瘍1例, 肝血管腫1例, 脾嚢胞1例などがあつた. CT 所見については記載のあった43例において low density (fat density) を示したものが36例であり, 腫瘍内部の均一性については, 均一としたもの2例に対して不規則, 網目状あるいは多房性など不均一性を示したものが21例であつた. これは腫瘍内部の組織構築が, 特に骨髄成分の比率により, また出血, 石灰化 (5例) などの2次的変化の有無により微妙に異なっているためと考えられる. 造影効果の有無については「有り」5例に対し, 「無し」16例であつた. 一方超音波断層法についてその所見を検討すると, 31例に高エコー領域との記載があつたが, 1例のみ低エコー領域を示したものがあつた. 内部エコーの均一性については「均一」14例に対して「不均一」8例であり, 本疾患に関しては解析力で CT にやや劣るものと考えられた.

本疾患の特徴として高率に肥満を伴うことが知られているが, われわれの検討した限りでも43例中21例 (49%) と約半数に肥満が認められている. さらに合併症として高血圧症, 糖尿病はおのおの47例中11例 (23%), 9例 (19%) に認められた.

欧米においては Dieckmann ら¹¹⁾ による59例の切除例の集計があるが, それによれば男女比は30対29と

ほぼ等しく, 50歳代に好発している. また左右差では30対27とやや左に多く, 本邦と異なる. 合併症については肥満が17例 (29%) に, 高血圧症が18例 (31%) に認められている.

副腎骨髄脂肪腫の成因として有力な仮説のひとつに副腎皮質細胞の化生説がある. Selye ら¹²⁾ は下垂体前葉抽出物を長期間投与されたラットの副腎皮質において, myelopoiesis が生じることを証明しており, また剖検にて Cushing 症候群, Addison 病などの内分泌疾患を合併する例のあることが以前より知られていた¹³⁾. このような点から corticotropin が副腎に対する刺激物質として考えられ, Oliva ら¹⁴⁾ の集計によると副腎疾患の合併例として, Addison 病1例, Cushing 症候群3例, 原発性 aldosterone 症1例, 先天性 17-hydroxylase 欠損症1例, 先天性 21-hydroxylase 欠損症3例などがあげられている. しかし本邦においては明らかな内分泌異常を認めた症例は3例¹⁵⁻¹⁷⁾ にすぎず, むしろ大多数の症例ではなんら異常値を示していない. 本症例の場合は血中 aldosterone 値の上昇と ACTH 値の軽度低下を認めたものの, 摘出した副腎に他の腫瘍の合併はなく, 骨髄脂肪腫との因果関係は不明である. その他, 化生の誘因として Olsson ら¹⁸⁾ は高血圧, 肥満を合併する点に注目し, これに伴う組織壊死物質が副腎の刺激となる可能性を述べているが, この説も未だ実証されていない.

副腎骨髄脂肪腫の治療法は患側副腎を含めた腫瘍摘出術である. しかしここ数年, 欧米において fine-needle aspiration による確定診断が行われ手術を回避した例が5例報告されている¹⁹⁻²³⁾. 本邦においては開放生検にて診断し摘出をしなかった例²⁴⁾ があるが, 針生検ののち経過観察にとどめている報告例はみないようである. 良性かつ非活性の腫瘍であることを考慮すると, 無症状である限り必ずしも摘出する必要はないことはもっともであるが, 逆に生涯にわたり経過観察をしいられることがかなりの負担になることも無視できない. incidentaloma で fine-needle aspiration により組織学的に本疾患と証明されたならば, 小腫瘍 (100 g 以下, 径 6 cm 以下) かつ高齢の場合に限り経過観察にとどめるのも一法かと思われる.

結 語

43歳, 女性に発生した右副腎骨髄脂肪腫の切除例を報告した. また本邦報告例54例の統計的観察を行った.

本論文の要旨は第161回東海泌尿器科学会において発表した。

文 献

- 1) 三宅 修, 細見昌弘, 松宮清美, ほか: 副腎骨髓脂肪腫の1例. 泌尿紀要 **35**: 1373-1377, 1989
- 2) 及川正道, 榛沢清明, 石岡国春, ほか: 超音波ガイド下穿刺吸引細胞診で正診し得た副腎骨髓脂肪腫 (adrenal myelolipoma) の1例. 日臨細胞会誌 **22**: 1043, 1983
- 3) 寿美周平, 石橋克夫, 山内民男, ほか: Adrenal Myelolipoma の1例. 日泌尿会誌 **77**: 1012, 1986
- 4) 坂井誠一, 比嘉 傳, 石川堯夫: 副腎骨髓脂肪腫の1例. 日泌尿会誌 **78**: 379, 1987
- 5) 國友忠義, 古谷四郎, 横山久光, ほか: 右副腎骨髓脂肪腫の1例. 細胞核病理学雑誌 **25**: 92-93, 1988
- 6) 桑原 孝, 加瀬隆久, 川原昌巳, ほか: 副腎骨髓脂肪腫の1例. 泌尿紀要 **34**: 2021-2023, 1988
- 7) Yokota T, Takahashi T, Fujita Y, et al.: Adrenal myelolipoma discovered incidentally on abdominal CT and MR imaging. Gastroenterol Jpn **24**: 195-197, 1989
- 8) 今中啓一郎, 増田富士男, 仲田浄治郎, ほか: 副腎骨髓脂肪腫. 臨泌 **43**: 415-417, 1989
- 9) 平野章治, 川口正一, 美川郁夫, ほか: 副腎骨髓脂肪腫の1例. 泌尿器外科 **2**: 523-526, 1989
- 10) 石田仁男, 加藤 温, 柄沢英一, ほか: 副腎骨髓脂肪腫. 泌尿器外科 **2**: 725-728, 1989
- 11) Dieckmann KP, Hamm B, Pickartz H, et al.: Adrenal myelolipoma: clinical, radiologic, and histologic features. Urology **29**: 1-8, 1987
- 12) Selye H and Stone H: Hormonally induced transformation of adrenal into myeloid tissue. Am J Pathol **26**: 211-233, 1950
- 13) Plaut A: Myelolipoma in the adrenal cortex. Am J Pathol **34**: 487-515, 1958
- 14) Oliva A, Duarte B, Hammadeh R, et al.: Myelolipoma and endocrine dysfunction. Surgery **103**: 711-715, 1988
- 15) 上領頼啓, 平尾 博, 江本 勲, ほか: 副腎 Myelolipoma の1例. 臨泌 **38**: 417-420, 1984
- 16) Fujita Y, Amemiya H, Shibuya A, et al.: Adrenal calcification and myelolipoma associated with Cushing's syndrome. Jikeikai Med J **32**: 495-501, 1985
- 17) 村木俊雄, 間宮 聰, 渡辺太郎, ほか: 糖尿病を併発し, 腎の奇形・血中 ACTH 様免疫活性の高値を伴った副腎骨髓脂肪腫の1例. 内科 **57**: 987-989, 1986
- 18) Olsson CA, Krane RJ, Klugo RC, et al.: Adrenal myelolipoma. Surgery **73**: 665-670, 1973
- 19) Pinto MM: Fine needle aspiration of myelolipoma of the adrenal gland. Report of a case with computed tomography. Acta Cytol **29**: 863-866, 1985
- 20) DeBlois MM and DeMay RM: Adrenal myelolipoma diagnosis by computed-tomography guided fine needle aspiration. A case report. Cancer **55**: 848-850, 1985
- 21) Galli L and Gaboardi F: Adrenal myelolipoma: report of diagnosis by fine needle aspiration. J Urol **136**: 655-657, 1986
- 22) Gould JD, Mitty HA, Pertsemliadis D, et al.: Adrenal myelolipoma: diagnosis by fine-needle aspiration. AJR **148**: 921-922, 1987
- 23) Neumann MP, Manivel C and Dehner LP: Adrenal myelolipoma: fine-needle aspiration of an asymptomatic retroperitoneal mass. Diagn Cytopathol **3**: 82-84, 1987
- 24) 松井遵一郎, 矢野直樹, 猪狩咲子, ほか: 副腎部に発生した骨髓脂肪腫の2症例. 日超音波医学会50回研究発表会講論集. 945-946, 1987

(Received on February 19, 1990)
(Accepted on July 24, 1990)