

外傷性副腎出血を契機に発見された褐色細胞腫の1例

佐野 太, 藤川 直也, 平井耕太郎

植木貞一郎, 北見 一夫

藤沢市民病院泌尿器科

PHEOCHROMOCYTOMA MANIFESTED BY
TRAUMATIC ADRENAL HEMORRHAGE

Futoshi SANO, Naoya FUJIKAWA, Kotaro HIRAI,

Teiichiro UEKI and Kazuo KITAMI

The Department of Urology, Fujisawa City Hospital

The presentation of pheochromocytoma is quite variable. We report a case of previously undiscovered pheochromocytoma which was manifested by traumatic retroperitoneal hemorrhage. A 79-year-old man fell from his bicycle and was admitted to the emergency room complaining of right flank pain. Enhanced computed tomography (CT) revealed hemorrhage around the right adrenal gland. Since the plasma catecholamine levels were elevated, we suspected the presence of pheochromocytoma. After absorption of the hematoma, the tumor appeared clearly. The diagnosis of pheochromocytoma was confirmed through urine catecholamine testing and ^{131}I -MIBG scintigraphy. Six months after the injury, the tumor was surgically resected. Traumatic hemorrhage of pheochromocytoma is extremely rare; only 3 cases have been reported in the literature.

(Hinyokika Kiyo 52 : 15-17, 2006)

Key words : Pheochromocytoma, Hemorrhage, Trauma

緒 言

褐色細胞腫は二次性高血圧の代表的な原因疾患として、また画像診断の普及とともに副腎腫瘍として無症候性に発見されることが多い。今回われわれはさきわめて稀な外傷性出血を契機として発見された褐色細胞腫の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：79歳，男性

主訴：右側腹部痛

既往歴：31歳，胃潰瘍（胃部分切除），66歳，胆石（胆嚢摘除），67歳 前立腺肥大症（TUR-P）高血圧の既往なし

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：2004年8月20日自転車運転中に横転，右側腹部を打撲し当院救急外来を受診した。

現症：意識清明，血圧 170/80 mmHg，脈拍68/分・整。右側腹部に自発痛あり。

血液検査所見：WBC $9,700/\text{mm}^3$ ，RBC $428 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，Hb 12.3 g/dl，Ht 37.0%，PLT $33.2 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，TP 6.8 g/dl，Alb 4.3 g/dl，AST 35 IU/l，ALT 21 IU/l，T-Bil 0.6 mg/dl，BUN 23 mg/dl，Cr 0.85

mg/dl，Na 139 mEq/l，K 3.6 mEq/l，Cl 104 mEq/l，CK 203 IU/l，Amy 133 IU/l，LDH 232 IU/l，FBS 193 mg/dl，CRP 0.2 mg/dl

画像所見：胸部単純レントゲン写真にて右第9肋骨骨折を，腹部造影CTにて右副腎から腎門部にかけて後腹膜血腫をみとめた（Fig. 1A）。動脈相で右副腎からの動脈性出血が疑われたため血管造影を施行したが，動脈造影時には活動性出血は認められなかった。塞栓術などは施行せずに保存的治療の方針とした。

経過：受傷直後は高血圧を認めたものの，入院後より血圧は 130/70 mmHg，脈拍70/分程度で経過し降圧剤を必要としなかった。8月30日のCTで血腫の拡大のないことを確認し一時退院となった。後日報告された血中カテコラミン値より褐色細胞腫の可能性が示唆された（Table 1）。受傷当日は著明に上昇，以降フォローアップ中も基準値を上回っていた。CT上，血腫の吸収とともに腫瘍の存在が明確となった（Fig. 1B）。尿中アドレナリン $126.3 \mu\text{g/day}$ （基準値3.0～15.0），ノルアドレナリン $238.1 \mu\text{g/day}$ （26.0～121.0），ドーパミン $3,378.6 \mu\text{g/day}$ （190.0～740.0），VMA 9.7 mg/day （1.3～5.1）と高値を示し， ^{131}I -MIBGシンチグラフィーで高度集積を認めたことから褐色細胞腫と診断した（Fig. 2）。 α ブロッカー先行投与の後，2005年2月22日開放手術にて右副腎摘除術

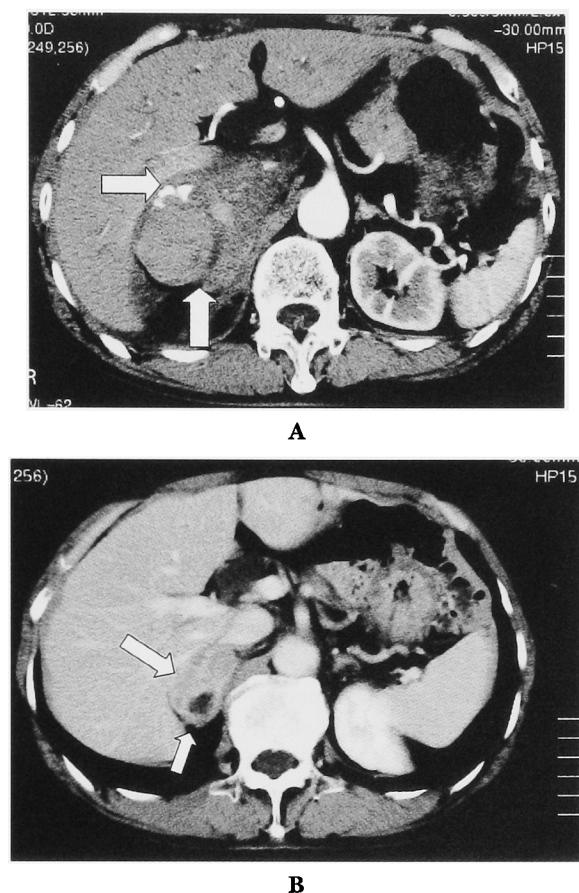


Fig. 1. A) CT on admission shows bleeding from right adrenal gland and suprarenal retroperitoneal hematoma. B) 5 months later the hematoma was absorbed, and the tumor with cystic component appears clearly.

Table 1. Changes of hormone levels of adrenal gland

	受傷後病日				基準値
	0	3	48	104	
Cortisol ($\mu\text{g/ml}$)	23.7	13	18.9	20.6	4.0-18.3
Aldosterone (pg/ml)	59	36	60	62	29.9-159
Adrenaline (pg/ml)	3,674	338	153	364	100未満
Noradrenaline (pg/ml)	2,840	938	334	763	100-450
Dopamine (pg/ml)	60	44	22	38	20未満

を施行した。腫瘍は周囲組織と高度に癒着しており出血後の変化と思われた。検体重量 24 g、大きさは $4.0 \times 3.5 \times 2.5 \text{ cm}$ であった。腫瘍断面は灰白色で一部に嚢胞形成を認めた (Fig. 3)。組織学的に褐色細胞腫が証明された。明らかな悪性所見は認められなかった。術後経過は良好でカテコラミン値も正常化し外来フォローアップ中である。

考 察

褐色細胞腫は高血圧、発汗、動悸などの典型的症状を呈する場合や、無症状で画像診断により偶発的に発

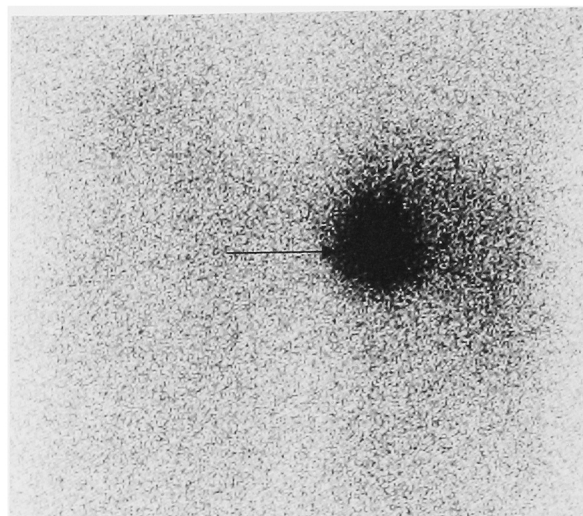


Fig. 2. ^{131}I -MIBG scintigraphy shows abnormal accumulations in the right adrenal gland.

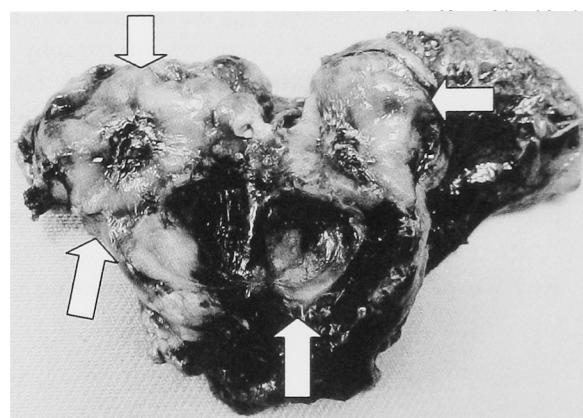


Fig. 3. The tumor was covered with a thick fibrous pseudocapsule secondary to hemorrhage.

見される場合など、その臨床像は多彩である。また時に自然破裂を起こし後腹膜血腫として発見される場合が知られているが¹⁾、本症例のように外傷性出血を契機に発見された例は検索しえた範囲ではわずか3例の報告をみるのみであった²⁻⁴⁾ (Table 2)。いずれも受傷前は無症候性であり、鈍的外傷後に高血圧を伴った後腹膜出血をきたした。1例は急性肺水腫を起こし受傷10時間後に死亡、剖検にて褐色細胞腫が証明された。別の1例には緊急手術が行われ、術後肺水腫の合併のため約3カ月の人工呼吸管理を含む長期療養を要した。Tanaka らは自然破裂した褐色細胞腫14例のうち死亡した4例はいずれも肺水腫が原因であるとしているが¹⁾、外傷例においても肺水腫の有無が経過に影響するものと考えられた。また、今回検討した症例中には経過に影響するような重篤な他臓器損傷は認めなかった。

成人の非外傷性副腎出血の原因は身体的ストレス、出血傾向、腫瘍、特発性などに分類されるが⁵⁾、特発性副腎出血は稀である⁶⁾ また本症例は軽微な受傷

Table 2. Reported cases of traumatic hemorrhage of pheochromocytoma

報告者	年齢	性別	受傷機転	部位	初診時主訴	高血圧		肺水腫	転 帰
						受傷前	受傷後急性期		
Primhak	14	M	蹴打	右副腎	息切れ, 嘔吐, 発汗	なし	あり	あり	手術なし, 受傷10時間後死亡
Dueck	16	M	叩打	右副腎近傍	右上腹部痛, 嘔吐	なし	あり	なし	待機的手術施行, 健在
May	34	F	転落	右副腎	右側腹部痛	妊娠時のみあり	あり	あり	緊急手術施行, 回復に長期を要した
自験例	79	M	転倒	右副腎	右側腹部痛	なし	あり	なし	待機的手術施行, 健在

機転による発症であったが, 外傷性副腎出血は重症外傷に多いとされる⁷⁾ 以上の点を考慮すると, 当初われわれは褐色細胞腫の存在を念頭においていなかったが, 外傷に加えて何らかの基礎疾患の存在を疑うべきであった。

また逆に手術前には本当に褐色細胞腫が存在するか否か慎重な検討を必要とした。実際褐色細胞腫を合併していない外傷性副腎出血症例で, 褐色細胞腫を合併しているか否か鑑別困難であった例が報告されている⁸⁻¹⁰⁾ すべての症例に当てはまるわけではないが, 褐色細胞腫の合併を疑った理由として, ①画像診断での腫瘍, 偽嚢胞の存在, ②受傷後高血圧などの臨床症状の発生, ③血中 尿中カテコラミンおよび代謝産物の上昇, ④ I-MIBG シンチグラフィーでの集積像, などが挙げられる。褐色細胞腫はしばしば嚢胞成分を伴うことがあり, CT で外傷後偽嚢胞と鑑別困難な場合がある。一般に片側副腎外傷では副腎機能に影響のないことが多いが, まれにカテコラミン高値をとることがある。原因として偽嚢胞 血腫による正常副腎の圧排^{8,9)}, 高濃度カテコラミンを含んだ嚢胞内容液の血管内流入の可能性が挙げられている⁸⁾ I-MIBG シンチグラフィー偽陽性を示した例では外傷後の副腎反応性過形成が原因であったとしている¹⁰⁾ このように各検査法に偽陽性が存在する以上, 受傷後保存的治療が許される状況であれば, 経時的变化を追う各種検査所見を総合的に判断して手術適応を決定することが重要であると思われた。

結 語

鈍的外傷により後腹膜出血をきたした褐色細胞腫の1例を経験した。軽微な外力でも出血をおこし, 時に肺水腫を伴う高カテコラミン性クリーゼに陥りうる褐色細胞腫の危険性が示唆された。

文 献

- 1) Tanaka K, Noguchi S, Shuin T, et al.: Spontaneous rupture of adrenal pheochromocytoma: a case report. *J Urol* **151**: 120-121, 1994
- 2) Primhak RA, Spicer RD and Variend S: Sudden death after minor abdominal trauma: an unusual presentation of pheochromocytoma. *BMJ* **292**: 95-96, 1986
- 3) Dueck A, Poenaru D and Kamal I: Hypertension following minor trauma: a rare presentation of pheochromocytoma. *Pediatr Surg Int* **15**: 508-509, 1999
- 4) May EE, Beal AL and Beilman GJ: Traumatic hemorrhage of occult pheochromocytoma: a case report and review of the literature. *Am Surg* **66**: 720-724, 2000
- 5) Kawashima A, Sandler CM, Ernst RD, et al.: Imaging of nontraumatic hemorrhage of the adrenal gland. *Radiographics* **19**: 949-963, 1999
- 6) 山口史朗, 橋本 治, 須賀昭信, ほか: 特発性副腎血腫の1例. *泌尿紀要* **48**: 347-350, 2002
- 7) Rana AI, Kenney PJ, Lockhart ME, et al.: Adrenal gland hematomas in trauma patients. *Radiology* **230**: 669-675, 2004
- 8) Suga H, Inagaki A, Ota K, et al.: Adrenal pseudocyst mimicking a pheochromocytoma found after a traffic accident. *Intern Med* **42**: 66-71, 2003
- 9) Khan A, Mutazindwa T, Hassan A, et al.: Unilateral traumatic adrenal haematoma presenting as pheochromocytoma. *Eur J Radiol* **28**: 133-135, 1998
- 10) Schmidt J, Mohr VD, Metzger P, et al.: Posttraumatic hypertension secondary to adrenal hemorrhage mimicking pheochromocytoma: case report. *J Trauma* **46**: 973-975, 1999

(Received on April 8, 2005)

(Accepted on July 15, 2005)