

副 腎 囊 腫 の 2 例

倉敷中央病院泌尿器科（部長 町田修三）

寺 地 敏 郎
寺 井 章 人
町 田 修 三
大 森 孝 平*

TWO CASES OF ADRENAL CYSTS

Toshiro TERACHI, Akito TERAJ, Shuzou MACHIDA
and Kouhei OOMORI*From the Department of Urology, Kurashiki Central Hospital**(Chief: Dr. S. Machida)*

Two cases of adrenal cysts are described. The first case is of bilateral adrenal cysts in a 44-year-old woman. It seems to be the first case of bilateral adrenal cysts in the Japanese literature.

The second case is of a left adrenal cyst with sandy calcification in a 71-year-old woman presenting with asymptomatic gross hematuria.

Several hormone levels in the cyst fluid were higher than in those in the plasma; cortisol and aldosterone in the first case, and cortisol in the latter. This finding suggests that the hormonal study of cyst fluid obtained by percutaneous needle aspiration under ultrasonic guidance is useful in the differential diagnosis of adrenal cyst from those arising from other organs.

Key words: Bilateral adrenal cysts, Hormonal study of cyst fluid

緒 言

副腎囊腫は良性疾患であり、かつ、内分泌学的に非活性であるため、大きな囊腫になるまで臨床症状を示さないことが多い。したがって、1959年 Abeshouse らの報告した155例中88例が剖検例であり¹⁾、1966年の Foster らの報告においても220例中100例が剖検例である²⁾。Foster らは臨床症状の Trias として腫瘍の圧迫による消化器症状と上腹部鈍痛、および腫瘍の触知をあげているが²⁾、現在では超音波診断、腹部CT などにより偶然発見される症例も少なくない。

われわれは、胃の検診にて発見された両側副腎囊腫の症例と、血尿を主訴とし腹部CTにて発見された左副腎囊腫の症例を経験したので、若干の考察を加え

て報告する。

症 例

症例 I

患者：44歳，女子，会社員

主訴：両側背部痛

家族歴：両親ともに健在，祖母が直腸癌にて死亡

既往歴：虫垂炎，声帯ポリープ，子宮筋腫

現病歴：1981年6月，両側背部痛あり，定期検診における胃部レ線にて胃の上方への圧排像を認め，当科紹介さる。両側季肋下部に弾性軟，表面平滑，可動性の腫瘍を触知，圧痛は認めず。IVP では両側上腎杯の下方への圧排を (Fig. 1)，CT では両側腎上極に Water-density tumors (Fig. 2) を，また，¹³¹I-cholesterol 副腎シンチグラムでは両側副腎の uptake の減少を認めた。

* 現：大阪赤十字病院泌尿器科

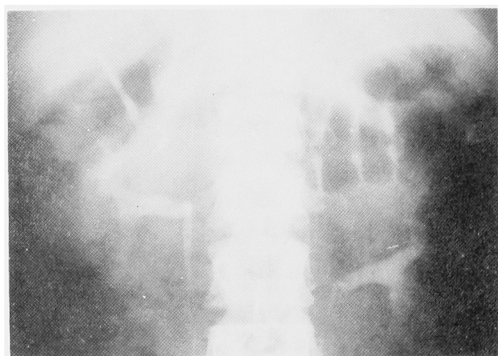


Fig. 1. Case 1. Excretory pyelogram showing normal function but bilateral pyelograms were compressed downward.

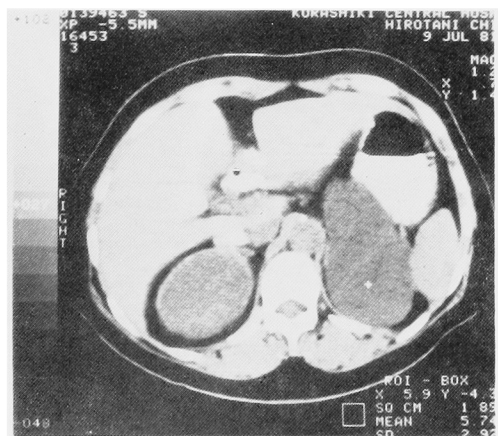


Fig. 2. Case 1. Computer tomogram shows bilateral suprarenal cystic masses.

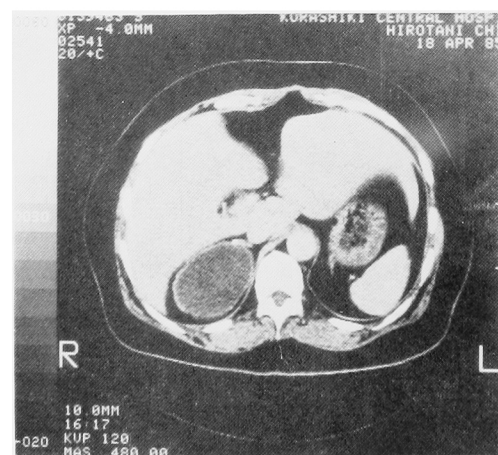


Fig. 3. Case 1. Computer tomogram 4 years after the aspiration of the left adrenal cyst shows no new cystic mass and no change of size of the right cystic lesion.

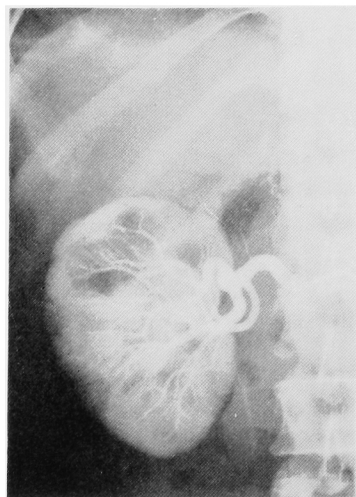


Fig. 4. Case 1. Selective right renal arteriography shows no abnormal stain but the nephrogram is deviated downward.

入院時現症：身長 160 cm, 体重 66.5 kg, 軽度肥満, 血圧 130/80 mmHg, 脈拍 70/min 整。

入院時検査所見：血液検査, WBC 4,900, RBC 437×10^4 , Hb 11.2 g/dl, Ht 36.1 %, Plt 29.3×10^4 , 出血時間 1.3 min, PT 9.7 sec, APTT 24.3 sec, TP 7.2 g/dl, A/G 1.48, Alb 4.3 g/dl, ZTT 7.7 KU, TTT 0.3 KU, ChE 6.16 IU/ml, TB 0.7 mg/dl, DB 0.3 mg/dl, GOT 16 IU/L, GPT 17 IU/L, LDH 357 IU/L, ALP 68 IU/L, LAP 56 IU/L, GTP 14 IU/L, Cr 0.9 mg/dl, BUN 10 mg/dl, Na 137 mEq/L, K 3.7 mEq/L, Cl 98 mEq/L, Tcho 1,180 mg/dl, FBS 88 mg/dl, 尿検査：尿蛋白 (±), 尿糖 (-), 尿沈渣：WBC 1-2/HPF, RBC 3-5/HPF, 円柱 (-), 細菌 (-)。

臨床経過：両側腎囊腫もしくは両側副腎囊腫を疑い, 1981年8月24日, unroofing 目的で左腰部斜切開にて後腹膜腔に達した。囊腫と左腎との剥離は容易で, 約 200ml の黄色透明な水樹液を吸引したところ, 囊腫は副腎より発生していた。両側副腎囊腫と考えられたため右側は放置, 左副腎は囊腫液の吸引のみにとどめた。術後12日目の CT において左腎上極前方に残存小囊腫を認めた。2年後の CT も術直後と著変なく, 新たな囊腫の形成は認めなかった。1985年4月, 右腰痛が続くため再入院となる。腎 CT 著変なく (Fig. 3), 大動脈撮影, 腎動脈撮影にて悪性所見は認めず右腎の下方への圧排を認めた (Fig. 4)。内分泌学的検査では PRA 0.7 ng/ml/H, aldosterone

100.0 pg/ml, adrenaline 0.03 ng/ml, noradrenaline 0.29 ng/ml, cortisol 12.4 μ g/dl とすべて正常. 同年 4 月 19 日, 超音波ガイド下に経皮的嚢腫穿刺術施行. 約 70 ml の淡褐色粘液状液体を吸引した. 嚢胞造影では壁の辺縁不整は認めなかったが, 嚢腫内にゲル状物質の残存が疑われた. 嚢腫液の細胞診では細胞成分は認めず, また, 細菌の発育も認めなかった. 嚢腫液中の renine activity 0.2 ng/ml/H, aldosterone 200 pg/ml, adrenaline 0.11 ng/ml, noradrenaline 0.19 ng/ml, cortisol 20.0 μ g/dl. 嚢腫穿刺吸引後腰痛は

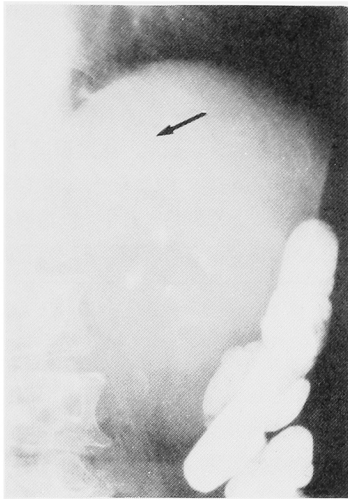


Fig. 5. Case 2. Excretory pyelogram shows normal pyelogram and sandy calcification (arrow) over the upper pole of the left kidney.

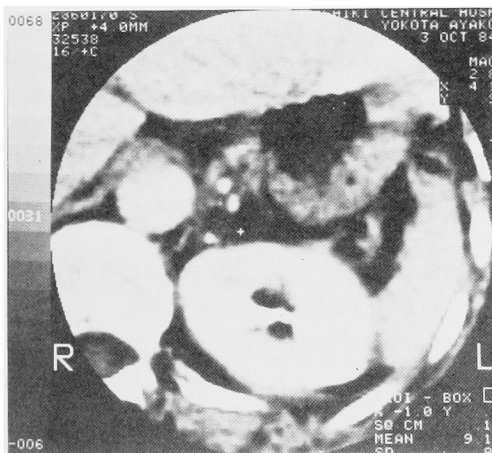


Fig. 6. Case 2: Computer tomogram shows the cystic lesion with sandy calcification in front of the upper pole of the left kidney.

軽減し, 現在, 外来にて経過観察中である.

症例 2

患者: 71 歳, 女子, 無職

主訴: 肉眼的血尿, 腰痛

家族歴: 特になし

既往歴: 子宮後屈

現病歴: 1984 年 9 月初めから 2 週間にわたり肉眼的血尿をきたし近医受診. 同年 9 月 18 日当科紹介され, IVP にて左腎上極に重なる砂状の石灰化像を認めるも, 腎盂腎杯像の変形は認めず (Fig. 5). 腎 CT では左腎上極前方に結節状石灰化巣を含む栗実大の腫瘤を認めた (Fig. 6). 膀胱鏡検査では膀胱粘膜は異常なく, 左尿管口から血尿の流出を認めた. 尿細胞診は class 2 で, 血管造影目的にて同年 11 月当科入院.

入院時現症: 身長 148 cm, 体重 42.0 kg, 118/70. 脈拍 66/min. 整, 腹部異常所見なし.

入院時検査所見 血液学的検査; WBC 6,200, RBC 379×10^4 , Hb 9.5 g/dl, Ht 30.0%, Plt 40.4×10^4 , 出血時間 1.5 min, PT 10.1 sec, APTT 24.6 sec, TP 6.1 g/dl, A/G 1.65, Alb 3.8 g/dl, ZTT 1.6 KU, TTT 0.2 KU, ChE 4.75 IU/ml, TB 0.2 mg/dl, DB 0.1 mg/dl, GOT 15 IU/L, GPT 8 IU/L, LDH 304 IU/L, ALP 65 IU/L, LAP 37 IU/L, GTP 13 IU/L, Cr 0.8 mg/dl, BUN 14 mg/dl, Na 143 mEq/L, K 4.2 mEq/L, Cl 104 mEq/L, FBS 88 mg/dl. 尿検査; 尿蛋白 (—), 尿糖 (—), WBC 1-3/HPF, RBC 1-3/HPF, 円柱 (—), 細菌 (—). (入院時すでに血尿は消失していた.) 内分泌学的検査; PRA 1.7 ng/ml/H, aldosterone 65.0 pg/ml, adrenaline 0.01 ng/ml, noradrenaline 0.28 ng/ml, cortisol 8.4 μ g/dl, 尿中 17-OHCS 2.6 mg/day, 17-KS 7.4 mg/day, VMA (—). レ線学的検査; 選択的左腎動脈造影で左副腎の内方への圧迫像を認めたが, 血管新生は見られなかった (Fig. 7).

臨床経過: 以上の所見により左副腎嚢腫を疑ったが, 副腎の石灰化像は砂状で悪性腫瘍も否定出来ず, 1984 年 12 月 5 日, 左腰部斜切開にて左後腹膜腔に達した. 左腎の剝離は容易で, その上極前方に黄色透明な内容物を透見できる多房性嚢腫を持つ左副腎を認めた (Fig. 8). 左副腎実質内に石灰化を思わせる結節状の硬結を数個触知したため, 左副腎摘除を行なった. 摘出標本の重量は 7 g, 嚢腫の内容液は 3 ml で, cortisol は 94.8 μ g/dl と高値であった. 術後経過は順調で, 現在外来にて経過観察中である. 入院時より顕微鏡的血尿も見られず, 血尿と副腎病変との関係は不

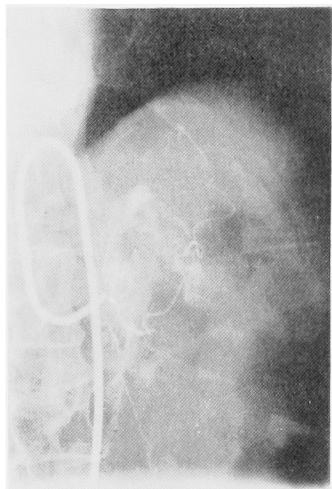


Fig. 7. Case 2: Selective left middle adrenal arteriography shows circular-sign but no neovascularity.

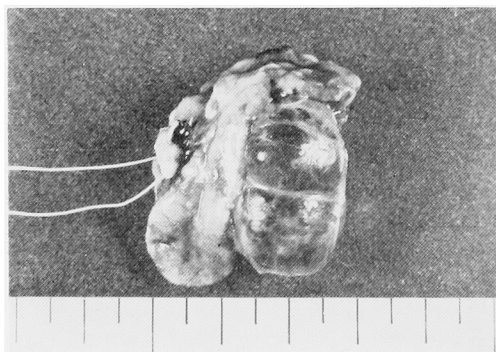


Fig. 8. Case 2: Gross appearance of the resected left adrenal gland. Translucent multiple cysts are revealed.

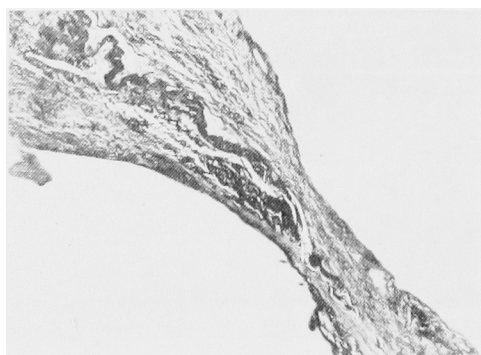


Fig. 9. Case 2: Microscopic view reveals collagen fiber and elastic fiber making cyst wall (Elastica-Van Gieson stain, $\times 400$).

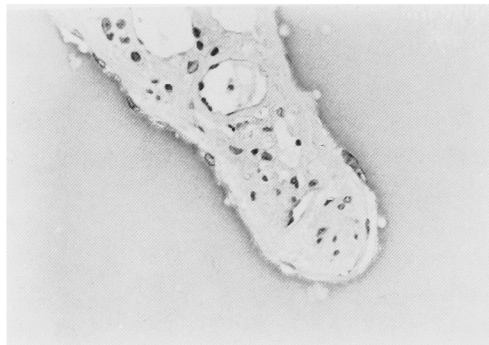


Fig. 10. Case 2: Several parts of the cyst wall have endothelial cells (Hematoxyline-Eosine stain, $\times 400$).

明である。

病理所見：囊腫壁は弾性繊維，膠原繊維よりなり (Fig. 9)，内腔壁の一部に内皮を持つが (Fig. 10) 胞体の第8因子はほとんど染まらず，内容液の性状と合わせると Abeshouse らの分類のリンパ管腫性囊腫と考えられた。

考 察

組織学的分類として Abeshouse らは155例の副腎囊腫を1. 寄生性性囊腫，2. 停滞性囊腫，3. 囊腫性腺腫，4. 内皮性囊腫，5. 偽囊腫に分けている¹⁾が，後に Foster らは220例をまとめ2, 3を一括して上皮性囊腫として分類している²⁾。わが国では1984年諸角らが本邦63例の検討を行ない，Abeshouse らの分類に従い囊腫35例，内皮性囊腫13例，停滞性囊腫7例，囊腫性腺腫1例，不明7例としている³⁾。

諸角らの本邦63例の集計によると，診断時年齢は1カ月から73歳，平均44.7歳，性別は男子25例，女子38例と女子に多く，患側は右側23例，左側39例，不明1例であり³⁾，両側性副腎囊腫としては自験例1が本邦における最初の報告と思われる。Abeshouse らは50歳から60歳台に最も多く，男女比は1:3で女子に多いとしている¹⁾。

副腎囊腫の症状としては副腎部鈍痛19例 (30%)，腫瘍触知10例 (16%)，消化器症状9例 (14%)などがあげられる。特徴的なものとして，諸角らは，高血圧が63例中20例にみられ，副腎摘出によって改善したものが5例，不変6例，不明9例としている³⁾。Raghavaiah らは腫大した囊腫による腎組織の圧迫と腎基部の伸展による高血圧の可能性を指摘しているが⁴⁾，高血圧を呈した症例の腫瘍が必ずしも大きいわけではなく，また，逆に，中村らは2,500gの囊腫摘出後も

Table 1. Summary of adrenal cyst with hematuria reported in the Japanese literature

No.	報告者	発表年	年齢	性別	患側	重量(g)	組織学的分類	血尿以外の自覚症状	高血圧の有無	石灰化の有無
1	石井 ⁶⁾	1965	62	男	左	2,500	停滞性	(-)	(+)	不明
2	土屋 ⁷⁾	1968	43	男	右	79	内皮性 or 上皮性	右腎部鈍痛	不明	不明
3	公平 ⁸⁾	1973	62	男	左	2,500	内皮性	頭眩 嘔吐	(+)	(-)
4	碓井 ⁹⁾	1973	58	女	右	90	偽	(-) (顕微鏡的 血尿)	(+)	(+)
5	井上 ¹⁰⁾	1977	27	女	右	500	偽	腰痛	(-)	(+)
6	吉岡 ¹¹⁾	1982	59	女	右	60	偽	(-)	(+)	(+)
7	自験例	1985	71	女	左	6	内皮性	腰痛	(-)	(+)

Table 2. Summary of adrenal cyst making endocrinological analysis of cyst's content reported in Japanese literature

No.	報告者	発表年	組織学的分類	コルチゾール	アルドステロン	カテコールアミン	その他
1	藤沢 ¹²⁾	1981	上皮性	血清値より 高値		血清値より高値	
2	仲田 ¹³⁾	1981	内皮性				17-OHCS 0.76mg/dl 17-KS 1.7mg/dl エストロゲン 1.1μg/dl
3	宇都宮 ¹⁴⁾	1982	偽	53μg/dl	150ng/dl	アドレナリン 0.04ng/ml ノルアドレナリン 0.06ng/ml	
4	木内 ¹⁵⁾	1982	内皮性	69.7μg/ml	759.4ng/dl		
5	養和田 ¹⁶⁾	1984	上皮性	34.5μg/dl	165ng/dl		17-OHCS 0.01mg/dl 17-KS 0.08mg/dl
6	諸角 ³⁾	1984	停滞性			アドレナリン 0.14ng/ml ノルアドレナリン 0.13ng/ml	17-OHCS 0.14mg/dl 17-KS 0.01mg/dl VMA 1.0ng/ml
7	白石 ¹⁷⁾	1984	偽	0.01ng/ml>		0.01ng/ml>	VMA 0.01ng/ml
8	自験例 1	1985	(未検案)	20.0μg/dl	20ng/dl	アドレナリン 0.11ng/ml ノルアドレナリン 0.19ng/ml	
9	自験例 2	1985	内皮性	94.8μg/dl			

高血圧に変化がみられなかった症例を報告している⁵⁾。副腎嚢腫は、かなり大きくなるまで無症状のことが多く、むしろ、高血圧で受診し超音波検査や腹部 CT により偶然に発見される場合も少なくないと考えられる。

血尿は自験例 2 を含め 7 例にみられたが、組織型や腫瘍の大きさととの明らかな関連は認めず (Table 1)、自験例を除き患側からの血尿かどうかは不明であり、さらに、自験例も入院時すでに血尿は消失しており、副腎嚢腫と血尿との関係は明らかでない。

副腎嚢腫の診断は、症状に特異的なものがなく内分泌学的にも非活性であるため以前はかなり困難であっ

た。Abeshouse らは 67 例中 9 例が¹⁾、Foster らは 120 例中 16 例のみが術前診断が可能であったとしている²⁾。しかし、現在では、超音波診断や腹部 CT などの画像診断により発見される無症状もしくは内分泌非活性の後腹膜腫瘍の増加も著しい。したがって、副腎嚢腫を他臓器の嚢腫性病変や副腎の内分泌非活性腫瘍と鑑別することが、さらに重要となってきた。

前者については、超音波ガイド下の経皮的穿刺吸引による内容物の内分泌学的検査が有用と考える。本邦報告例においては自験例 1, 2 を含め 9 例が内分泌学的検討を行なっている (Table 2) が、cortisol, aldosterone, および catecholamine について検討を

加えている6例中白石らの症例¹⁷⁾を除き、そのいずれかが血清値に比し高値である。Jacobi らは、副腎囊腫内のホルモン活性は周囲組織からの受動的拡散によるとしており¹⁸⁾、囊腫内溶液のホルモン活性、特に cortisol, aldosterone, catecholamine のいずれかが血清中のそれに比し高値であるという所見は、副腎囊腫に特異的と考えられる。また、¹³¹I-cholesterol を用いた副腎シンチグラムでは囊腫は coldarea として描出されるが、井上らは肝の囊腫性病変との鑑別に肝シンチグラム、副腎シンチグラムの併用とその subtraction scintigraphy の有用性を説いている¹⁹⁾。もちろん、腎シンチグラムとの併用も有用であろう。

後者、すなわち、副腎の内分泌非活性腫瘍との鑑別は治療を決定するうえで最も重要である。

超音波検査や CT により多くの無症状の副腎腫瘍が発見されるに至った現在では、副腎の囊腫性病変のすべてを手術により診断することの非は明らかであり、より侵襲の少ない診断方法の確立が望まれる。しかし、副腎摘除が唯一の治療法である内分泌非活性副腎皮質癌を術前に完全に否定することが困難な場合も少なくないことも事実である。特に、自験例2のごとく副腎の石灰化を伴う場合は副腎囊腫と確定診断を下すことが躊躇される。しかし、副腎囊腫における副腎の石灰化もまれではなく、その頻度は癌の場合よりもむしろ高いとする意見もあり^{2,19)}、石灰化の存在がすなわち癌の合併を疑わせる所見とはならない。Abeshouse らは155例中16例¹⁾、Foster らは220例中22例²⁾、中村らは23例中7例に石灰化がみられたとしている⁵⁾。さらに、Abeshouse らは石灰化のみられた16例中10例が¹⁾、また、中村らは7例中5例が偽囊腫であったとし、偽囊腫に石灰化の頻度が高いと述べている⁵⁾。囊偽腫の石灰化の形状は卵殻状が特徴的で¹⁾、砂状石灰化は内皮性囊腫に特徴的とする意見もある¹⁹⁾。対する副腎皮質癌の石灰化は顆粒状もしくは塊状を呈するとされている。しかし、石灰化の形状を鑑別の決め手とすることには無論無理があり、副腎シンチグラムや血管造影が必要となる。

動脈造影法において、血管新生を伴わない腫瘍による圧排像は副腎囊腫に特徴的であるが、中村らは囊腫に一致した造影剤の貯留と、静脈の早期造影がみられた1例を報告しており⁵⁾、注意深い読影が必要である。自験例2では、副腎動脈造影において長径2cmの腫瘍による圧排像を認めたが副腎静脈造影は行なえなかった。Cerny らは副腎静脈撮影法にて1cmの腫瘍も囊腫か否か鑑別可能であるとし、その有用性を問いている¹⁹⁾。

また、Nosher らは超音波ガイド下吸引生検により診断が可能であった2例の転移性副腎癌と1例の原発性副腎癌を示している²⁰⁾。一部の組織しか見ることのできない吸引生検による原発性副腎腫瘍の悪性、良性の鑑別は困難であるが、囊腫内溶液と囊腫周囲組織の吸引生検は副腎囊腫への腫瘍の合併の有無を知るには有用と考えられる。

内分泌非活性副腎皮質癌の一部のもの（機能性皮質癌）は尿中 17-OHCS, 17-KS が高値で²¹⁾、副腎囊腫との鑑別に役立つ。

副腎囊腫の治療としては、従来、周囲組織の圧迫症状を示したり悪性腫瘍を否定できない場合を除いては手術適応はないとされてきた。Kearney らは副腎囊腫からの悪性腫瘍の報告はないとしており²²⁾、また、本邦報告例においても、三橋らが副腎神経芽細胞腫から二次的に発生したと考えられる小児副腎囊腫の1例を報告している²³⁾以外は全例良性である。したがって、自験例1で、穿刺吸引後4年を経た CT で囊腫の再貯留を認めていないことを考えると、超音波ガイド下の穿刺吸引は囊腫造影や生検による副腎囊腫の診断のみならず、治療としても有効な手段と考えられる。

結 語

1. 本邦第1例目と思われる両側副腎囊腫の症例を報告した。

2. 副腎囊腫と他臓器の囊腫との鑑別には、超音波ガイド下の経皮的穿刺吸引による内溶液の内分泌学的検査が有用と考える。

3. 副腎囊腫の治療として、超音波ガイド下の穿刺吸引は有効かつ非侵襲的手段であり考慮されるべき手技と考える。

この論文の要旨は第110回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

文 献

- 1) Abeshouse GA, Goldstein RB and Abeshouse BS: Adrenal cysts : Review of the literature and report of three cases. J Urol 81 : 711 ~ 719, 1959
- 2) Foster DG : Adrenal cysts : Review of literature and report of cases. Arch Surg 92: 131~143, 1966
- 3) 諸角誠人・高橋茂喜・宮崎尚文・川地義雄・引地巧侃・小川由英・北川龍一: 副腎囊腫の一例。泌

- 尿紀要 30 : 907~911, 1984
- 4) Raghavaiah NV and Singh SM Adrenal cyst associated with hypertension. Br J Urol 47: 136, 1975
- 5) 中村 達・飛鋪修二・斉藤英夫・小林武夫・菅家透・野本信之助・梅園 明：副腎嚢腫の1治験例。癌の臨床 24 : 848~852, 1978
- 6) 石井琢一郎：副腎嚢腫の1例。日泌尿会誌 56 : 768, 1965
- 7) 土屋文雄・豊田 泰・吉邑貞夫・徳江章彦：副腎嚢腫の2例。日泌尿会誌 59 : 434, 1968
- 8) Kohdaira T, Kurotsuchi M and Hosaka M: Two cases of adrenal cyst. Yokohama Med Bull 24: 43~54, 1973
- 9) 碓井 亜・平山多秋・大村一郎：副腎嚢腫の1手術例。西日泌尿 35 : 36~40, 1973
- 10) 井上武夫・長田尚夫・田中一成：副腎嚢腫の1例。臨泌 31 : 351~354, 1977
- 11) 吉岡光明・筒井理裕・斉藤昭夫・武部和夫・山本実・竹下 元・西沢 一・工藤 一：副腎嚢腫の1例と本邦集計37例の臨床像。日内会誌 71 : 1647, 1982
- 12) 藤沢 真・宮田昌伸・久島貞一・稲田文衛・黒田一秀：副腎嚢腫の1例。日泌尿会誌 72 : 1107, 1981
- 13) 仲田浄治郎・町田豊平・増田富士男・三木 誠・大石幸彦・赤坂雄一郎・小寺重行・近藤直弥・高橋知宏・城 謙輔・藍沢茂雄：巨大副腎嚢腫の1例。泌尿紀要 27 : 157~162, 1981
- 14) 宇都宮正登・奥山明彦・松田 稔・友渕 基・高光義博：副腎嚢腫の1例。泌尿紀要 28 : 183~190, 1982
- 15) 木内利明・藤岡秀樹・高羽 津・綿谷真理・暁千津子：副腎嚢腫の1例。泌尿紀要 28 : 1133~1139, 1982
- 16) 養和田滋・木村 明・友石純三・木下健二・板垣英二・内川 澄：副腎嚢腫の1例。臨泌 38 : 69~71, 1984
- 17) 白石哲朗・松井武志・松尾慎一郎：副腎嚢腫の1例。日泌尿会誌 75 : 533, 1984
- 18) Jacobi JD, Carballeira A and Fishman LM: Adrenal cysts : hormonal contents and functional evaluation. Acta Endocr 88: 347~353, 1978
- 19) Cerny JC, Warshawsky A, Hall J, Bookstein J, Lindenauer SM and Morley G : The preoperative diagnosis of adrenal cysts. J Urol 104: 787~789, 1970
- 20) Noshier JL, Amorosa JK, Leiman S and Plafker J : Fine needle aspiraion of kidney and adrenal gland. J Urol 128: 895~899, 1982
- 21) 田村 泰・大橋教良・岩本逸夫・熊谷 朗：副腎皮質癌の臨床。癌の臨床 20 : 839~845, 1978
- 22) Kearney GP, Mahoney EM, Maher E and Harrison JH : Functioning and nonfunctioning cysts of the adrenal cortex and medulla. Am J Surg 134: 363~368, 1977
- 23) 三橋将人・富澤 滋・黒梅恭芳・平敷淳子・松山四郎・渡辺岩吉：巨大な副腎嚢腫を呈した神経芽細胞腫の1例。小児科臨床 33 : 271~275, 1980
- (1985年11月9日受付)