

両側精巣 Leydig 細胞腫瘍に合併した副腎腺腫の 1 例

国立大阪病院泌尿器科 (医長 : 高羽 津)

小林 義幸, 安永 豊, 松宮 清美

岡 聖次, 高羽 津

国立大阪病院病理部 (部長 : 倉田明彦)

倉 田 明 彦

健保連大阪中央病院泌尿器科 (医長 : 清原久和)

近藤 宣幸, 清原 久和

ADRENAL ADENOMA WITH BILATERAL TESTICULAR LEYDIG CELL TUMOR: A CASE REPORT

Yoshiyuki Kobayashi, Yutaka Yasunaga, Kiyomi Matsumiya,
Toshitsugu Oka and Minato Takaha

From the Department of Urology, Osaka National Hospital

Akihiko Kurata

From the Department of Pathology, Osaka National Hospital

Nobuyuki Kondoh and Hisakazu Kiychara

From the Department of Urology, Osaka Central Hospital

A case of left adrenal adenoma with bilateral testicular Leydig cell tumor in a 38-year-old man is reported. He had received bilateral orchiectomy for testicular Leydig cell tumor at the age of 37. After operation computed tomography revealed left adrenal mass and aldosterone-secreting adrenal tumor was suspected. Left adrenalectomy was performed and histopathological diagnosis was adrenocortical adenoma. Serum ACTH, aldosterone and plasma renin activity were still high after operation. The adrenal cortex and gonads are of common embryologic origin and the histologic pattern may overlap. Examination of the adrenal gland is necessary for the patient with a testicular Leydig cell tumor.

(Acta Urol. Jpn. 37: 891-894, 1991)

Key words: Adrenal adenoma, Leydig cell tumor

緒 言

精巣 Leydig 細胞腫瘍は精巣腫瘍の 1~2% を占める比較的稀な腫瘍である¹⁾。今回、われわれは両側精巣 Leydig 細胞腫瘍²⁾の術後 follow-up 中、左副腎腫瘍を認めた 1 例を経験したので報告する。

症 例

患者 : 38 歳, 男性

主訴 : 左副腎腫瘍精査

既往歴・家族歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 1989 年 6 月, 健保連大阪中央病院において両側精巣 Leydig 細胞腫瘍に対し両側高位除辜術を施行した。術後 follow-up 中、腹部 CT にて左副腎の腫瘤を指摘され、血管造影等の結果、左副腎腫瘍が疑われた。患者の都合により国立大阪病院泌尿器科を紹介され、精査加療を目的として 1990 年 2 月 26 日入院となった。

入院時現症 : 身長 156.2 cm, 体重 72.1 kg. 血圧 114/70 mmHg. 両側鼠径部に手術痕を認めた。

入院時検査成績 : 検血, 検尿において異常所見なし。血液生化学 : Na 140 mEq/l, K 4.1 mEq/l と正常。

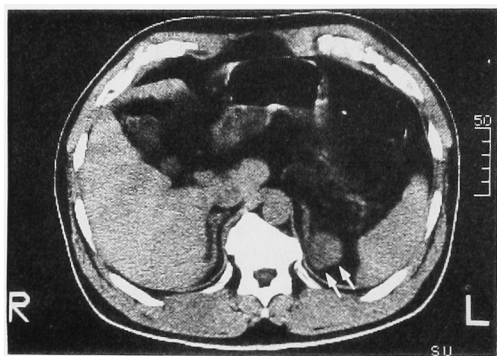


Fig. 1. A computed tomography (CT) demonstrated left adrenal mass (arrows).

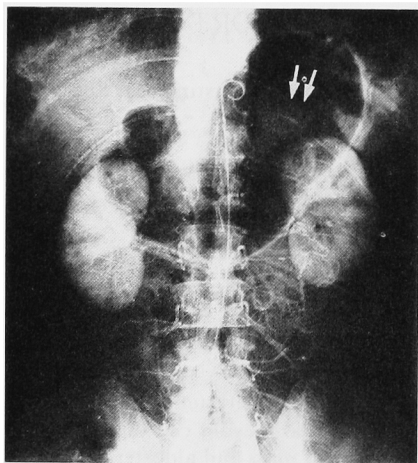


Fig. 2. Aortography showed moderately hypervascular mass above the left kidney (arrows).

Table 1. Venous sampling data before surgery.

内分泌学的検査
静脈血サンプリング

	(normal)	Peripheral vein	IVC (infrarenal)	IVC (suprarenal)	Lt. adrenal vein
Cortisol ($\mu\text{g/dl}$)	(3.7-13.0)	10.8	8.8	7.7	21.9
Aldosterone (pg/ml)	(10.9-62.7)	400	240	220	3200
Renin activity (ng/ml/hr)	(0.3-2.9)	7.3	8.5	7.5	6.1
Testosterone (ng/ml)	(4.1-11.0)	6.3	7.0	4.5	7.7

肝酵素の上昇なし。LDH も 201 U/l と正常域であった。内分泌：ACTH 120 pg/ml (normal 30~60), 血中アルドステロン 280 pg/ml (10.9~62.7), レニン活性 4.8 ng/ml/hr (0.3~2.9) と高値を認めた。コル

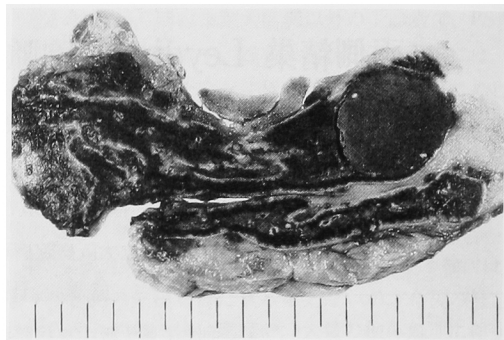


Fig. 3. The surgical specimen, showing the adenoma with black cut surface.

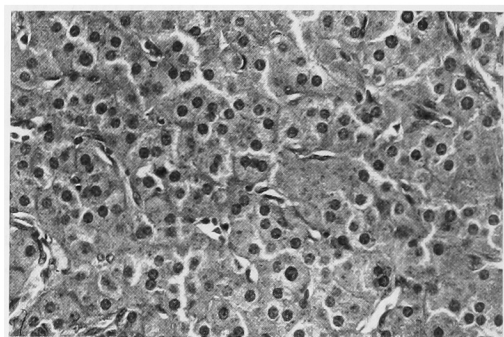


Fig. 4. The tumor nodule shows monotonous proliferation of eosinophilic compact cells arranged in nest and cord. Pathohistological diagnosis was cortical adenoma (H.E. stain, $\times 400$).

チゾールは 13.4 $\mu\text{g/dl}$ と正常上限, 血中テストステロンは 6.3 ng/ml と正常域であった。

画像所見：腹部 CT；左腎上方に low density の腫瘍を認めた (Fig. 1, arrows)。血管造影；左腎上方にやや hypervascularity を示す腫瘍が認められた (Fig. 2, arrows)。

静脈血サンプリング：左副腎静脈でアルドステロンの著明な高値が認められた (Table 1)。

以上の所見より左副腎のアルドステロン分泌腫瘍と診断されたが、Leydig 細胞腫瘍の転移など悪性腫瘍の合併も否定出来ず1990年3月5日左副腎摘除術を施行した。

摘除標本：75×30×30 mm, 60g。断面では黒褐色を呈する径 20 mm の結節とそれに連なる黒色の zone が認められた (Fig. 4)。病理組織学的には結節は好酸性で均一な compact cell より構成され、一部に lipofuscin 顆粒が認められた (Fig. 5) 病理組織学的には副腎皮質腺腫と診断された。

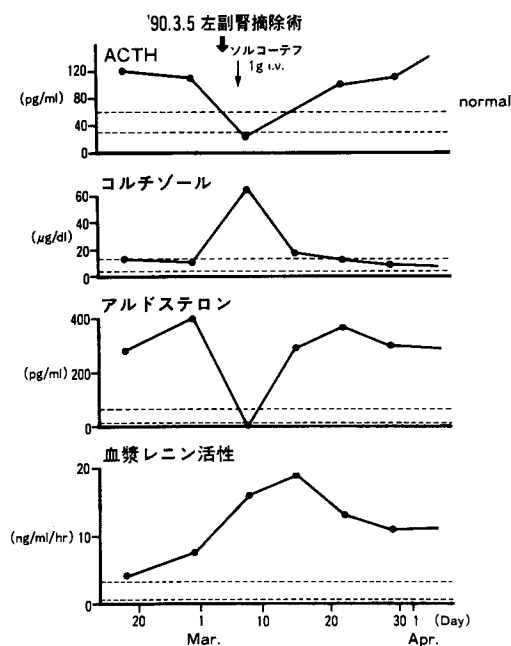


Fig. 5. Course of the hormonal patterns.

術後経過: 術後一過性にデータの変動を認めたが, その後アルドステロン値は再び術前の値まで上昇し高値で経過, レニン活性は術前よりも高値となり, ACTH も高値で経過している (Fig. 5). 全身状態はその後特に症状の発現なく経過し血圧の変動なども認められていない。

以上より本症例はアルドステロン分泌腫瘍であったと考えられるが, 低カリウム血症の所見なく, 血圧も正常で臨床的に特に症状を認めなかったこと, また術後もアルドステロンが高値であること, さらにレニン活性については術前から高値で経過していることなどから, 現在なお注意深く経過を観察中である。なお, 術後施行したトルコ鞍撮影においては下垂体の腫大は認められなかった。

考 察

精巣 Leydig 細胞腫瘍は精巣腫瘍の 1~2% をしめる稀な腫瘍である。90% は良性であると言われているが, 転移を認める悪性例が 10% に認められ, その平均生存率は診断から 4 年であるとされる¹⁾。悪性例は平均年齢 55 歳と比較的高齢者で認められ, 19 歳以下の悪性例の報告は 1 例もないとされている³⁾。Leydig 細胞腫瘍の発生誘因として大野ら⁴⁾ は内分泌環境の変化を強調しており, また実際にエストロゲン投与例に発症した報告もみられている^{3,5)}。小児例ではほとん

どの症例に性早熟症状が認められるが, 成人例では約 30% に内分泌症状が認められ女性化乳房の発現頻度が高い。文献的に転移は後腹膜リンパ節, 肝, 肺, 骨に多いとされているが, 稀に副腎転移をきたした症例の報告^{6,7)} もある。また副腎皮質と精巣組織は発生学的にはともに mesodermal origin で posterior urogenital ridge より生じ, 組織学的にも非常に密接な関連性があり, 先天性副腎過形成での精巣 Leydig 細胞腫瘍合併症例^{1,8)} や副腎発生の Leydig 細胞腫瘍の報告例⁹⁾ も散見される。そのほか悪性 Leydig 細胞腫瘍の治療において, adrenolytic agent である o,p'-DDD が有効であったとの報告¹⁰⁾ や, Leydig 細胞腫瘍において副腎皮質ホルモンの分泌を認めたとの報告^{8,11)} がある他, 精巣 Leydig 細胞腫瘍の発症は ACTH stimulation の結果であるとの説¹²⁾ があるなど内分泌学的に Leydig 細胞腫瘍と副腎腫瘍の関連性を示唆する報告が見られ, Leydig 細胞腫瘍の発生をみたときには副腎皮質に対する検索も重要であろうと思われる。自験例においては病理組織学的には両腫瘍は別個のものと考えられたが精巣腫瘍診断時の CT で不運にも副腎レベルの断面がとらえられておらず, 副腎の腫瘍発生時期については不明である。また自験例の副腎腫瘍は術前検査成績よりアルドステロン分泌腫瘍と考えられたが, レニン活性はむしろ高値であること, 正カリウム血であり臨床的にも正常血圧であったこと, さらには術後もアルドステロン値の低下がみられていないことより原発性アルドステロン症とは著しく異なる所見が認められた。レニン活性が術後さらに高値を呈していることからレニン活性上昇をきたす疾患, たとえばレニン産生腫瘍などの可能性も術前の CT では指摘できなかったが完全には否定できないと思われる。さらに摘出副腎自体がかなり巨大であったこと, 腫瘍摘除後も ACTH, レニン, アルドステロンが高値で経過していることなどから, 下垂体-副腎-性腺系におけるなんらかの内分泌学的異常が base に存在する可能性も考えられ, 対側副腎の検索も含め十分な経過観察が必要であると考えている。なお, 自験例の副腎腫瘍は肉眼的に黒褐色を呈しており, いわゆる黒色腺腫と考えられたが, 黒色を呈する要因となる lipo-fuscin 顆粒は腺腫内のみでなく, むしろ組織学的に正常と考えられる皮質部に多く認められたため, あえて「黒色腺腫」とせずに腺腫とした。

結 語

両側精巣 Leydig 細胞腫瘍に合併した副腎腺腫の 1 例を報告した。副腎皮質と精巣組織は発生学的に同

じ origin で非常に密接な関連性があり, Leydig 細胞腫瘍の発生をみたときには副腎皮質に対する検索も重要であろうと思われる.

本論文の要旨は第 131 回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した.

文 献

- 1) Caldamone AA, Altbarmakian V, Frank IN, et al.: Leydig cell tumor of testis. *Urology* **14**: 39-43, 1979
- 2) Kondoh N, Koh E, Nakamura M, et al.: Bilateral Leydig cell tumors and male infertility: case report. *Urol Int* **46**: 104-106, 1991
- 3) 近藤猪一郎, 藤井 浩, 工藤 治, ほか: 辜丸悪性間質細胞腫瘍一症例および文献的考察一. *日泌尿会誌* **74**: 1453-1466, 1983
- 4) 大野三太郎, 斉藤宗吾, 日根野卓, ほか: 辜丸間質細胞腫瘍の 1 例. *泌尿紀要* **21**: 79-88, 1975
- 5) Deshmukh AS and Hartung WH: Leydig cell tumor in patient on estrogen therapy. *Urology* **21**: 538-539, 1983
- 6) Damjanov I, Katz SM and Jawett MAS: Leydig cell tumors of the testis. *Ann Clin Lab Sci* **9**: 157-163, 1979
- 7) Mikuz G, Schwarz S, Hoepfel-Kreiner I, et al.: Leydig cell tumor of the testis: morphological and endocrinological investigation in two cases. *Eur Urol* **6**: 293-300, 1980
- 8) Franco-Saenz R, Antonipillai I, Tan S, et al.: Cortisol production by testicular tumors in a patient with congenital adrenal hyperplasia (21-hydroxylase deficiency). *J Clin Endocrinol Metab* **53**: 85-90, 1981
- 9) Hilton CW and Pollock WJ: Virilization due to a Leydig cell adrenal adenoma. *South Med J* **81**: 924-925, 1988
- 10) Azer PC and Braunstein GD: Malignant Leydig cell tumor; objective tumor response to o,p'DDD. *Cancer* **47**: 1251-1255, 1981
- 11) Radfar N, Bartter FC, Easley R, et al.: Evidence for endogenous LH suppression in a man with bilateral testicular tumors and congenital adrenal hyperplasia. *J Clin Endocrinol Metab* **45**: 1194-1204, 1977
- 12) Abelson D, Bulaschenko H, Trommer PR, et al.: Malignant interstitial-cell tumor of the testis treated with o,p'DDD *Metabolism* **15**: 242-256, 1966

(Received on August 27, 1990)
(Accepted on February 19, 1991)