

両側同時性副腎骨髓脂肪腫の1例

大阪府立成人病センター泌尿器科 (部長 : 古武敏彦)

今村 亮一, 木内 利明, 藤本 雅哉

目黒 則男, 前田 修, 細木 茂

黒田 昌男, 宇佐美道之, 古武 敏彦

BILATERAL SYNCHRONOUS ADRENAL MYEOLIPOMAS :
A CASE REPORT

Ryoichi IMAMURA, Toshiaki KINOCHI, Masaya FUJIMOTO,

Norio MEGURO, Osamu MAEDA, Shigeru SAIKI,

Masao KURODA, Michiyuki USAMI and Toshihiko KOTAKE

From the Department of Urology, Osaka Medical Center for Cancer and Cardiovascular Diseases

A 70-year-old man, who was diagnosed by computed tomographic scan as having bilateral synchronous adrenal myelolipomas 6 years ago during the follow-up of fatty liver, underwent tumor resection at our Department because of growth of bilateral tumors without any subjective symptoms. Histopathological examination revealed mature adipose tissue cells without atypism and areas of hematopoietic tissue, including the myelotic, lymphotic, erythrocytic, and megakaryocytic cells. The diagnosis of myelolipoma was confirmed. The in vivo doubling time of bilateral tumors was 16.1 months and 31.3 months, respectively.

(Acta Urol. Jpn. 44 : 801-803, 1998)

Key words: Adrenal myelolipoma, Bilateral synchronous tumors, Doubling time

緒 言

副腎骨髓脂肪腫は骨髓成分と脂肪成分からなる, 内分泌非機能性良性腫瘍である. 近年の画像診断の進歩に伴い, 偶発的に発見された報告も増加している. 今回われわれは他疾患の経過観察中, 偶然発見された両側同時性副腎骨髓脂肪腫を経験したので報告する.

症 例

患者 : 70歳, 男性

主訴 : 両側副腎腫瘍精査

家族歴 既往歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 1991年より脂肪肝を指摘され, 近医にて精査加療を行っていた. 同年4月, 腹部CTを施行したところ左右副腎に一致する部位にそれぞれ4.1×2.9 cm, 4.9×3.0 cmの境界明瞭で内部がやや不均一な low density の腫瘍を認めた (Fig. 1). 内分泌機能に異常はなく, 画像所見から骨髓脂肪腫と診断した. 腹部痛などの自覚症状を認めないために, 経過観察を行っていた. 1993年11月の腹部CTでは左が6.0×4.2 cm, 右が5.2×3.3 cmと増大傾向を示していたが, 自覚症状は出現しないままであった. 1997年5月のCTでは, 左右とも11.3×8.4 cm, 7.0×6.3 cmとさらに増大していた. 腫瘍の増大が著明である

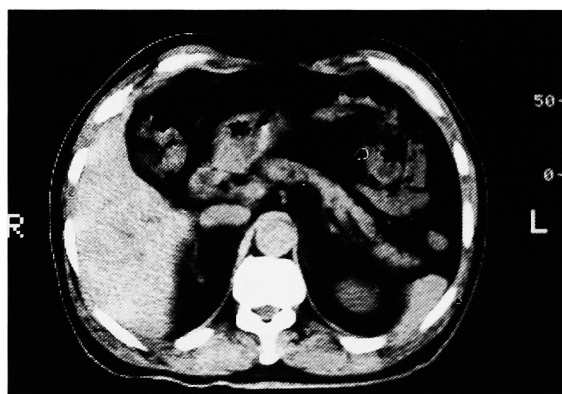


Fig 1. CT showed bilateral low density masses with smooth margins. The mass consisted of a mixture of low (fatty) density area and high density area in April 1991.

ことに加え, 患者本人の希望もあり, 手術目的にて, 1997年6月当科入院となった.

入院時現症 : 身長 154 cm, 体重 59 kg. 血圧 116/54 mmHg, 脈拍60回/分整. 触診上両側とも腫瘍を触れなかった.

入院時検査所見 : 血沈 4 mm/1時間, 末梢血一般, 血液化学, 検尿も異常所見を認めなかった. 内分泌機能検査では, ACTH 139 pg/ml (正常値 6~36 pg/ml), コルチゾール 17.8 µg/dl (正常値 5~15 µg/dl)

と上昇しているものの、デキサメサゾン試験にて ACTH 5 pg/ml, コルチゾール 1.7 μ g/dl と抑制された。また、コルチゾールの日内変動はタ 10.1 μ g/dl と正常であった。血中アドレナリン、ノルアドレナリン、ドーパミン、尿中 17-KS, 17-OHCS, VMA は正常値であった。アドステロール副腎シンチグラフィは、施行しなかった。

腹部超音波検査：左副腎に 10 cm 大、右副腎に 8 cm 大の内部が homogeneous な hyperechoic mass を認めた。

腹部 CT：1997年5月の CT では、左 11.3×8.4 cm, 右 7.0×6.3 cm と、増大していた。また腫瘤により下大静脈は前方に強く圧排され、両側性副腎骨髄脂肪腫と診断した (Fig. 2)。副腎以外に骨髄脂肪腫の存在を認めなかった。

頭部 MRI：下垂体に腺腫などは認めなかった。

腹部痛など自覚症状がないものの腫瘤が増大傾向にあり、いずれ腹部症状の出現や自然破裂の可能性があり、患者自身の全身状態がよく、今後の余命を十分期待できることなどを考慮し、1997年7月9日、手術を施行した。

手術所見：腹部正中切開にて行った。まず左の腫瘤から摘除を行ったが、正常副腎との境界が不明瞭であったため一塊として摘除した。一方、右正常副腎組織を十分に残すために、右の腫瘤は副腎に一部腫瘍を残したまま摘除した。摘除標本は、被膜に囲まれた弾性軟の腫瘤であり、断面は黄褐色の充実性腫瘍であった。摘除腫瘍の重量は、左 550 g, 右 105 g であった。

病理組織：弱拡大にて正常副腎組織に隣接して脂肪細胞と造血細胞の混在を認め、強拡大では脂肪細胞とともに巨核球、骨髄球、赤芽球を認め、骨髄脂肪腫と

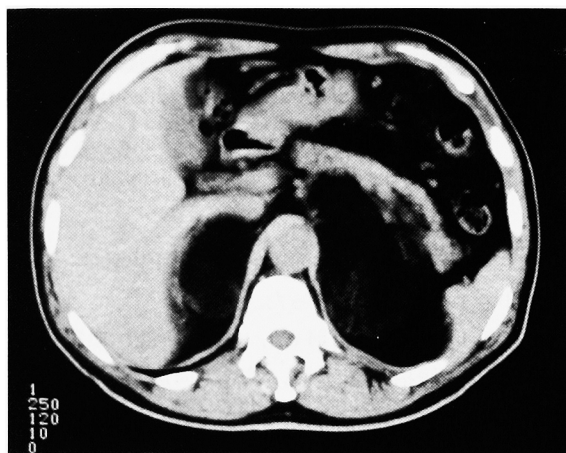


Fig 2. The masses gradually grew, and the right mass compressed the inferior vena cava in the most recent CT in May 1997.

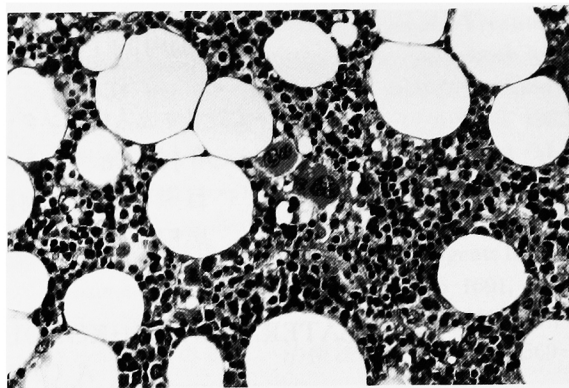


Fig 3. Histopathological findings showed the tumor consisting of fat tissue, hematopoietic tissue and adrenal cortex (H.E. $\times 10$). Hematopoietic tissues consisted of bone marrow.

診断した (Fig. 3)。

術後経過は順調で、内分泌検査所見にも異常は認めず、副腎皮質ホルモンの補充を必要とせずに退院となった。

考 察

骨髄脂肪腫は副腎のみならず後腹膜、腎、胃、胸郭にも発生する内分泌非機能性良性腫瘍である¹⁾。副腎骨髄脂肪腫の発生機序は、副腎皮質細胞の化生、胎生期の造血組織である間葉組織の遺残物による形成、血流で運ばれた骨髄細胞の塞栓の3説があり、未だ議論が分かれている。最も有力な説は副腎皮質細胞の化生であり、一因として ACTH の過剰分泌が考えられている。Selye ら²⁾は、ラットに長期間下垂体前葉抽出物を投与することによって副腎皮質に myelopoiesis を誘発したと報告している。特に ACTH の過剰分泌による影響が大きく、両側発症の場合 ACTH の副腎への刺激も考えられている³⁾。また慢性疾患、熱傷、腫瘍、動脈硬化、高血圧、肥満などが引き金となるといふ意見もあり⁴⁾、統一した見解が得られていないのが実状である。

腹部 CT による偶発副腎腫瘍の頻度は 0.29%⁵⁾といわれ、剖検での副腎骨髄脂肪腫の発見率は 0.08～0.2%^{4,6,7)}とされている。性差はほとんどなく、右側が左側に比し 3 倍多く、両側性を示すものは全体の 5～8% である。左に比し右に多いのは肝胆道系の疾患の精査時に偶然発見されることが多いからと推測される。ほとんどの場合無症状であるが、稀にクッシング症候群、アジソン病、原発性アルドステロン症など機能性副腎腺腫を合併した症例もある^{8,9)}。

画像診断において、超音波検査では辺縁明瞭な高エコー像となり、CT, MRI では脂肪の存在を示す腫瘤を認め、内部は不均一で、エンハンスは受けない。わが国における報告例の集計では約 15% に腫瘍の石灰

Table 1. Doubling time of myelolipoma

Case	Initial tumor diameter (cm)	Final tumor diameter (cm)	Follow-up time (months)	DT (months)
1	4.5	5.5	4	4.6
2	12	17	52	35.0
3	2.2	2.5	10	18.0
4	5.0	6.0	7	8.9
5	5.8	6.0	14	95.1
6	7.0	7.5	12	53.6
7	10×6.0×6.5	11×8.0×7.0	48	24.6
8	4.1×2.9×3.0 4.9×3.0×3.5	11.3×8.4×9.0 7.0×6.3×6.0	73 73	16.1 31.3

Case 1-6 were reported in ref. 12, case 7 in ref. 13, and case 8 in the present study.

化を認めている¹⁰⁾

治療としては一般的には経過観察であるが腹部症状のある場合、内分泌機能の異常がある場合、腫瘍径の増大を認める場合は、手術療法を考慮する。

自験例では両側とも腫瘍径の経時的な計測が可能であったので、腫瘍容積増倍時間 (doubling time, 以下 DT) を算出した¹¹⁾ 長径のみの場合は、球状として、3方向の径の判明している場合は、楕円体として体積を計算した。1991年4月の腫瘍径と、1997年5月の腫瘍径より DT を算出すると、左が16.1カ月、右が31.3カ月であった。Johns Hopkins 病院では、20例 (1例のみ両側性腫瘍) の報告がなされており、このうち経時的変化を計測しえた症例は12例、そのうち増大傾向を示したものは6例であった¹²⁾ この6例、Meaglia ら¹³⁾ の1例報告および自験1例2病巣の計8例9病巣の DT を算出したところ、4.6カ月から95.1カ月 (平均値31.9カ月、中央値24.6カ月) であった (Table 1)。腫瘍径が2倍になるには、DT の3倍の期間を要し、したがって初回到 CT など確定診断がつけば、内分泌機能異常や腹部症状などが起こらないかぎり、頻回に検査を行うことなく経過観察を行えば良いものと考えられる。

結 語

両側同時性副腎骨髓脂肪腫の1例について報告した。

本稿の要旨は第160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) Prahlow JA, Loggie BW, Cappellari JO, et al.: Extra-adrenal myelolipoma: report of two cases.

South Med J 88: 639-643, 1995

- 2) Selye H and Stone H: Hormonally induced transformation of adrenal into myeloid tissue. Am J Pathol 26: 211-233, 1950
- 3) 辻畑正雄, 申 勝, 三宅 修, ほか: 両側副腎 Myelolipoma の1例. 泌尿紀要 40: 695-698, 1994
- 4) Olsson CA, Krane RJ, Klugo RC, et al.: Adrenal myelolipoma. Surgery 73: 665-670, 1973
- 5) López JM, Fardella C, Arteaga E, et al.: Adrenal macrotumors diagnosed by computed tomography. J Endocrinol Invest 13: 581-585, 1990
- 6) McDonnell WV: Myelolipoma of Adrenal. Arch Pathol 61: 416-419, 1956
- 7) 松崎 理, 長尾孝一, 斉賀 一, ほか: Adrenal myelolipoma の組織発生に関する病理組織学的研究. 癌の臨 29: 228-232, 1983
- 8) Oliva A, Duarte B, Hammadeh R, et al.: Myelolipoma and endocrine dysfunction. Surgery 103: 711-715, 1988
- 9) Kanj HA, Noronha J, D'Aguillo AF, et al.: Bilateral adrenal myelolipomas with Cushing's syndrome. JAMA 259: 3034-3036, 1988
- 10) 坂上和弘, 今津哲夫, 西村和郎, ほか: 石灰化を伴った副腎骨髓脂肪腫の1例. 西日泌尿 55: 941-944, 1993
- 11) 藤本直浩, 杉田篤生, 寺沢良夫, ほか: 腎細胞癌早期発見を目的とした検診間隔の理論的検討. 日泌尿会誌 85: 1717-1722, 1994
- 12) Han M, Burnett AL, Fishman EK, et al.: The Natural history and treatment of adrenal myelolipoma. J Urol 157: 1213-1216, 1997
- 13) Meaglia JP and Schmidt JD: Natural history of an adrenal myelolipoma. J Urol 147: 1089-1090, 1992

(Received on April 24, 1998)

(Accepted on July 27, 1998)