

副腎腫瘍と鑑別が困難であった後腹膜奇形腫の1例

前之園良一, 齋藤 賢吉, 伊夫貴直和, 高原 健

稲元 輝生, 能見 勇人, 東 治人

大阪医科大学泌尿生殖・発達医学講座泌尿器科学教室

A CASE OF RETROPERITONEAL TERATOMA DIFFICULT TO DISTINGUISH FROM ADRENAL TUMOR

Ryoichi MAENOSONO, Kenkichi SAITO, Naokazu IBUKI, Kiyoshi TAKAHARA,

Teruo INAMOTO, Hayahito NOMI and Haruhito AZUMA

The Department of Urology, Osaka Medical College

Retroperitoneal tumor is a rare tumor, with an incidence of 0.2 to 0.8%. Among such tumors, the frequency of teratomas ranges from 6 to 18%, and adult cases are extremely rare. We report a mature teratoma that occurred in the retroperitoneum of 43-year-old woman. She experienced back pain and a left adrenal gland mass was detected on computed tomography. Computed tomography and magnetic resonance imaging findings showed a cyst made of fat and calcification, but it was difficult to distinguish retroperitoneal teratoma from adrenal tumor in this case. The tumor was removed, and was mainly composed of a hair ball and fat. Pathological examination showed that the tumor was composed of stratified squamous epithelium, keratinizing component, cartilage, and bronchial epithelium, while no continuity with the adrenal gland was observed. Therefore, the tumor was diagnosed as a retroperitoneal teratoma.

(Hinyokika Kiyo 63 : 525-528, 2017 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_63_12_525)

Key words : Retroperitoneal teratoma, Mature cyst, Differential diagnosis

緒 言

後腹膜腫瘍の発症率は0.2~0.8%と稀な疾患といわれている。その中でも奇形腫の占める頻度は6~18%程度と言われており、小児発症の占める割合が多い中で成人発症例はきわめて稀とされている^{1,2)}。今回われわれは副腎腫瘍と後腹膜腫瘍との鑑別が画像上困難であった成人女性発症の後腹膜成熟奇形腫を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者 : 43歳, 女性

主 訴 : 背部痛

現病歴 : 42歳時に上記主訴認め、近医を受診した。

腹部エコーで左腎上部に径 10 cm 大の囊腫を指摘された。CT 検査で 70×58×106 mm の腫瘍影を認め左副腎皮様囊腫が疑われ、精査加療目的で当科紹介となった。

入院時現症 : 身長 172.1 cm, 体重 62.8 kg, 体温 36.6°C, 脈拍 80/分, 呼吸 18/分, SpO₂ 98% (room air), 血圧 127/90 mmHg, 左側腹部痛 (+), CVA 叩打痛 R) - / L) ±, 触診で腫瘍触知されなかった。

血液検査 : WBC 6,230/ μ l, Hb 12.8 g/dl, CRP 0.01 mg/dl, CEA 2.1 ng/ml, CA19-9 25.2 U/ml, CA125 14.1 U/ml と腫瘍マーカー上昇認めず。



Fig. 1. An abdominal X-ray scan shows an arcuate calcification in the left hypochondrium.

画像検査 : KUB で左季肋部に弓状石灰化影を認めた (Fig. 1)。CT では脂肪組織濃度を含む囊胞と石灰化を認めた (Fig. 2)。また同部位の MRI では T1WI・T2WI にて高信号を呈し脂肪抑制された (Fig. 3)。

術前検査で副腎の同定は出来ず後腹膜奇形腫または副腎奇形腫の診断で摘除術を施行した。

手術所見 : 全身麻酔下で chevron 切開にて開腹した。周囲との強固な癒着は認めなかったが、副腎を同定することはできず腫瘍および周囲の結合組織を可及的に広範囲に切除した。手術時間は 4 時間 40 分で終了した。



Fig. 2. A contrast computed tomography scan shows a cystic tumor of 6 cm in diameter in the left retroperitoneal region.

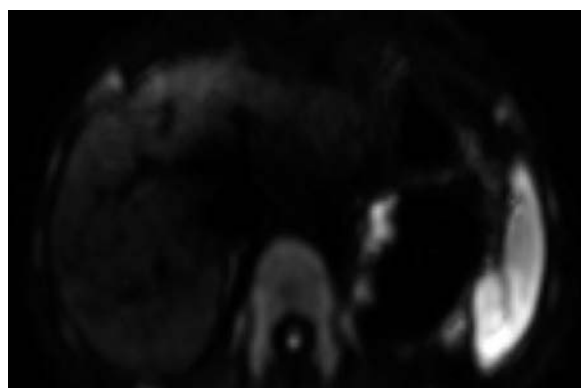
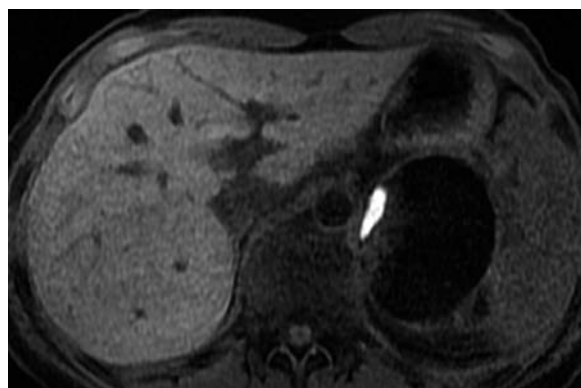


Fig. 3. T1-weighted magnetic resonance image shows a unilocular cyst near the left kidney (A). Fat suppression shows a fat-rich condition (B).

摘出標本：Hair ball や褐色の脂肪成分と思われる粥状成分で満たされていた (Fig. 4)。

病理検査：重層扁平上皮や角化成分・軟骨・気管支上皮を認めたが標本中の副腎との連続性なく，後腹膜由来の成熟型奇形腫と診断された。明らかな悪性所見も認めなかった (Fig. 5)。

術後経過良好であり，術後8日目で退院となった。術後3年経過したが再発は認めていない。

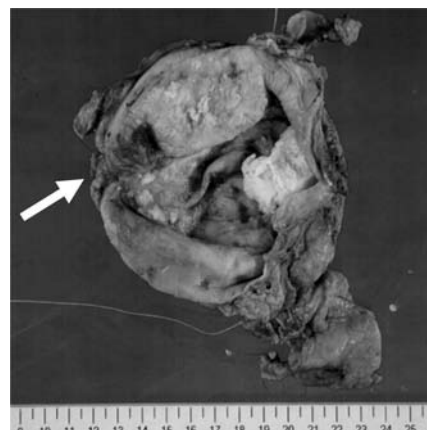


Fig. 4. The retroperitoneal tumor is filled with a hair ball (→) and fat.

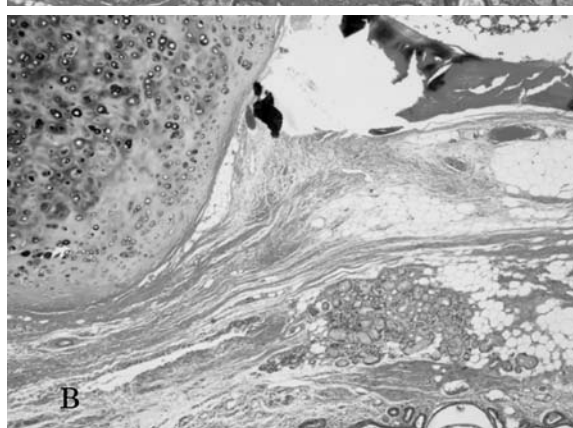
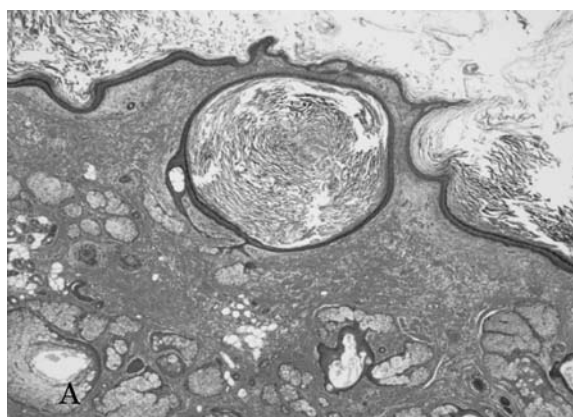


Fig. 5. Histopathological findings of the tumor (hematoxylin and eosin stain). A: A structure covered with stratified squamous epithelium and pseudostratified columnar epithelium is seen. B: Cartilaginous tissue and bronchial epithelium are seen. Pathological diagnosis is mature cystic teratoma.

考 察

後腹膜腫瘍は全体的に稀な疾患であり，全体の0.2～0.8%程度で，そのうち奇形腫の占める頻度は6～18%程度とされている¹⁻⁴⁾。

本症には特徴的な症状はなく，腹部腫瘤触知のほか

食欲不振、腹痛など腫瘍径増大に伴う消化器症状が多い。成人例の報告では腫瘍径が十分大きくなるまで症状を認めることなく病変が指摘されない⁵⁾。単純撮影で弓状の石灰化や歯牙陰影を認めることが特徴であり、CT/MRI では内部に脂肪や水、石灰化成分などが認められる。腫瘍マーカー（CEA, CA19-9, AFP）の上昇例も散見される⁴⁾が特異的なものはない。Kuoらは63.6%に腹部・側腹部痛を認め、左側（81.8%）、嚢胞状（63.6%）、石灰化（72.7%）を伴うと報告している⁶⁾。

2000～2016年までの検索では自験例を含めて32例報告されていた（Table 1）。奇形腫は原始生殖細胞を発生母組織として形成されると考えられ、発生学上の3胚葉成分のうち2ないし3成分を含む腫瘍とされている。一般的に55～84%が10歳以下で1歳以下が30～

52%と小児例が多い^{7,8)}。成人例はMccray⁹⁾が1937年に最初に報告したが、比較的稀で性差としては同等ないし若干女性が多い¹⁰⁾とされ、その理由として性腺原基が卵巣に分化する時期が精巣に比較すると遅れるためと考えられている¹¹⁾。一方で性腺腫瘍から転移し発症するケースも報告されている¹⁵⁾。肉眼分類では嚢胞性奇形腫と充実性奇形腫に分類され、内部成分の組織学的分化度により成熟奇形腫と未熟奇形腫に分類される。嚢胞性奇形腫は成熟型かつ良性のことが多く、充実性は未熟型で悪性が多いとされているが、中野らは充実性か嚢胞性かは良悪性の鑑別には役立たないと指摘した³⁾。年齢とともに悪性化の頻度が増え、成人の後腹膜奇形腫では約25.8%の頻度で悪性転化がある（小児期の悪性転化率6.8%）との報告¹²⁾もあり、成人の後腹膜奇形腫は外科的切除が原則である。

Table 1. 本邦における後腹膜奇形腫の報告例（卵巣嚢胞・転移は除く）

症例	報告者（報告年）	年齢	性別	症状	部位	治療	良性/悪性
1	徳田（2016）	78	女性	背部痛	後腹膜	開腹腫瘍摘出術	良性
2	佐野（2015）	49	女性	尿閉	仙骨前面	尾骨合併腫瘍切除術	良性
3	佐野（2015）	23	女性	なし	仙骨前面	尾骨合併腫瘍切除術	良性
4	矢野（2014）	36	女性	不妊	後腹膜	穿刺・吸引	良性
5	Shindo（2013）	24	女性	腹部腫瘍	後腹膜	腫瘍切除術	カルチノイド
6	呉屋（2012）	40	女性	検診	後腹膜	腹腔鏡下摘出術	良性
7	木下（2012）	40	女性	なし	後腹膜	腹腔鏡下腫瘍摘出術	良性
8	清水（2011）	37	男性	右下腹部痛	後腹膜	開腹腫瘍摘出術	良性
9	康本（2011）	49	女性	検診	副腎	腫瘍切除術	良性
10	Tsutsui（2011）	27	女性	なし	後腹膜	腹腔鏡下腫瘍摘出術	良性
11	林（2011）	15	女性	発熱・腹痛	後腹膜	腫瘍切除術	良性
12	Terado（2010）	27	男性	間欠的腹痛	後腹膜	開腹腫瘍摘出術	悪性
13	Sato（2010）	37	男性	左下腹部痛	後腹膜	腹腔鏡補助下摘出術	良性
14	鈴木（2010）	39	女性	なし	後腹膜	腹腔鏡下腫瘍摘出術	良性
15	川井田（2009）	56	女性	右下腹部痛	後腹膜	開腹腫瘍摘出術	良性
16	Cheung Wang L（2008）	47	女性	腹痛	後腹膜	腫瘍切除術	悪性
17	佐藤（2009）	65	男性	検診	後腹膜	腫瘍切除術	良性
18	杉尾（2007）	54	女性	腹部違和感	後腹膜	腫瘍切除術	良性
19	城（2007）	11カ月	女児	腹部膨満	後腹膜	開腹腫瘍摘出術	良性
20	鈴木（2007）	37	男性	上腹部痛	後腹膜	腫瘍切除術	良性
21	猪狩（2007）	21	女性	腹痛	後腹膜	腫瘍切除術	良性
22	Leandros Emmanuel（2005）	47	男性	背部痛・右側腹部違和感	後腹膜	生検・化学療法	悪性
23	Song Eun-Seop（2005）	72	女性	臀部腫瘍	後腹膜	開腹腫瘍摘出術	悪性
24	塩田（2004）	29	男性	右胸痛	後腹膜	腫瘍切除術	良性
25	Yamasaki（2004）	53	女性	頻尿	後腹膜	腫瘍切除術	カルチノイド
26	李（2003）	28	女性	上腹部痛	後腹膜	腫瘍切除術	悪性
27	青竹（2003）	20	女性	腹痛	後腹膜	後腹膜鏡補助下腫瘍摘出術	良性
28	松本（2001）	40	女性	右季肋部痛	後腹膜	開腹腫瘍摘出術	良性
29	湯村（2000）	59	男性	上腹部痛	後腹膜	腫瘍切除術	良性
30	柳（2000）	35	男性	上腹部痛	後腹膜	腫瘍切除術	良性
31	滝本（2000）	25	女性	左背部痛	後縦隔	腫瘍切除術	良性
32	自験	43	女性	背部痛	後腹膜	開腹腫瘍摘出術	良性

成熟性であれば完全切除がなされていれば再発の可能性は非常に低いとされているが、残存成熟奇形腫では術後8年で悪性転化する例¹³⁾も報告されており長期の経過観察が必要と思われる。近年では早期回復を目的として鏡視下に施行される例も散見される¹⁴⁾。

今回の症例でも背部痛を主訴として受診するまでは特に検査を受ける機会はなかった。その他症状を認めず、KUBでの異所性石灰化や腹部CTで内部が脂肪濃度で一部歯牙と考えられる石灰化を含む嚢胞性腫瘍を認める一方、腫瘍マーカーの上昇は認めなかった。

副腎との連続性を疑い副腎奇形腫と術前診断するも、病理では副腎との連続性を認めず後腹膜奇形腫と診断された。画像検査では副腎奇形腫との鑑別に困難であったが診断から比較的早い段階で加療し、また術中も十分な範囲の切除をしたと考えており現在術後3年が経過するが、現在まで再発は認めていない。主な症状であった背部痛も消失している。

結 語

今回われわれは成人で発症した後腹膜奇形腫の1例を経験した。一部悪性化する症例もあり、診断後に速やかにかつ十分な範囲で外科的切除を行う必要があると考えられる。

文 献

- 1) Pack GT and Tabah EJ: Collective review-primary retroperitoneal tumors—a study of 120 cases—. *Int Abstr Surg* **99**: 209–231, 1954
- 2) 小野寺健一, 笹生俊一, 久富木原真, ほか: 成人の後腹膜未熟奇形腫の1治験例—過去21年間の本邦における成人後腹膜奇形腫33例の統計的検討—. *臨外* **39**: 1181–1185, 1984
- 3) 中野芳明, 川崎勝弘, 川端雄一, ほか: von Recklinghausen 病に合併した成人後腹膜奇形腫の1例. *日消外会誌* **2**: 2893–2896, 1993
- 4) 柳 健, 恩田昌彦, 田尻 孝, ほか: 成人にみられた CA19-9 産生性成熟型巨大後腹膜奇形腫の1例. *日臨外会誌* **61**: 237–241, 2000
- 5) Li S, Li H, Ji Z, et al.: Primary adrenal teratoma: clinical characteristics and retroperitoneal laparoscopic resection in five adults. *Oncol Lett* **10**: 2865–2870, 2015
- 6) Kuo EJ, Sisk AE, Yang Z, et al.: Adrenal teratoma: a case series and review of the literature. *Endocr Pathol* **28**: 152–158, 2017
- 7) Palumbo LT, Cross KR, Smith AN, et al.: Primary teratomas of the lateral retroperitoneal space. *Surgery* **26**: 149–159, 1949
- 8) Arnheim EE: Retroperitoneal teratomas in infancy and childhood. *Pediatrics* **8**: 309–327, 1951
- 9) Mecray PM and Frazier WD: Retroperitoneal teratoma. *Arch Surg* **35**: 358–362, 1937
- 10) 岡田安弘, 山中弥太郎, 平方 仁, ほか: 後腹膜腔に発生した成熟奇形腫の1例. *泌尿器外科* **7**: 1207–1208, 1994
- 11) Gross RE, Clatworthy HW and Meeker IA: Sacrococcygeal teratomas in infants and children. *Surg Gynecol Obstet* **92**: 341, 1951
- 12) Sato F, Mimata H and Mori K: Primary retroperitoneal mature cystic teratoma presenting as an adrenal tumor in an adult. *Int J Urol* **17**: 817, 2010
- 13) 伊藤敬一, 飯ヶ谷知彦, 梅沢明弘: 初回化学療法後8年の経過で後腹膜残存奇形腫に Malignant transfusion を認めた精巣腫瘍の1例 3回の後腹膜リンパ節郭清術の病理組織からの考察. *日泌尿会誌* **89**: 622–626, 1998
- 14) Cadeddu MO, Mamazza J, Schlachta CM, et al.: Laparoscopic excision of retroperitoneal tumors: technique and review of the laparoscopic experience. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* **11**: 144–147, 2001
- 15) Collen J, Carmichael M and Wroblewski T: “Metastatic malignant teratoma arising from mediastinal nonseminomatous germ cell tumor: a case report”. *Mil Med* **173**: 406–409, 2008

(Received on April 13, 2017)

(Accepted on August 29, 2017)