

感染を伴った巨大な出血性副腎偽嚢腫の1例

埼玉医科大学総合医療センター泌尿器科 (主任: 斉藤 博教授)

酒井 康之, 山田 拓己, 長浜 克志

一柳 暢孝, 鎌田 成芳, 谷沢 晶子

福田 博志, 渡辺 徹, 斉藤 博

A CASE OF GIANT HEMORRHAGIC ADRENAL PSEUDOCYST
WITH INFECTION

Yasuyuki SAKAI, Takumi YAMADA, Katsushi NAGAHAMA,

Nobutaka ICHIYANAGI, Shigeyoshi KAMATA, Akiko TANIZAWA,

Hiroshi FUKUDA, Tohru WATANABE and Hiroshi SAITO

From the Department of Urology, Saitama Medical Center, Saitama Medical School

A 51-year-old woman was admitted with general fatigue, high fever and left upper abdominal pain. Abdominal computed tomography revealed a left adrenal mass, 15 cm in diameter with regular margins, the contents of which were not enhanced with contrast medium. The mass had heterogeneous echogenicity on the abdominal ultrasonograph. Serum hormonal levels were almost normal. Despite treatment with antibiotics, the high fever persisted. Based on these findings, the differential diagnosis was adrenal abscess or a nonfunctional adrenal tumor. Transabdominal left adrenalectomy was performed. Pathological examination revealed a hemorrhagic adrenal pseudocyst with infection. The patient's condition improved soon after the operation.

(Acta Urol. Jpn. 46: 315-317, 2000)

Key words: Adrenal pseudocyst, Infection

緒 言

副腎嚢腫は比較的稀な疾患であるが、画像診断の発達により無症状で発見される例が増えており、欧米では Neri ら¹⁾が1999年にそれまでの報告625例を集計、本邦では松田ら²⁾が1993年に121例を集計する程となっている。しかし、今なお画像診断上悪性が否定できないなどで手術に踏み切られる例が少なくない。今回われわれは感染を伴った巨大な出血性副腎偽嚢腫を経験したので若干の文献考察を加え報告する。

症 例

患者: 51歳, 女性

主訴: 全身倦怠感

既往歴: 重症感染症, 腹部外傷, 抗凝固剤内服などの既往なし。

家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1カ月以上続く全身倦怠感で受診, 腹部CTで左後腹膜腔に径15cmの巨大な腫瘍を認め精査加療目的で入院した。

身体所見: 身長155cm, 体重68kg, 血圧150/90mmHg, 脈拍78/min, 体温38.2°C, 左上腹部に圧

痛あり。

検査所見: 血液検査 WBC 10,800/ μ l (左方移動なし), Hb 10.0 g/dl (正球性正色素性), Plt 48.0 $\times$ 104/ μ l, CRP 21.4 mg/dl, 生化学検査, 凝固系は異常値なし。検尿は正常所見であった。副腎内分泌検査: 血中 ACTH 9 pg/ml, コルチゾール 26.3 μ g/ml, アルドステロン 52 pg/ml, アドレナリン 12 pg/ml, ノルアドレナリン 217 pg/ml, ドーパミン 10未満 pg/ml, 尿中コルチゾール 199 μ g/day, アルドステロン 1.8 μ g/day, カテコールアミン (総) 147 μ g/day, メタネフリン 0.23 mg/day, ノルメタネフリン 0.22 mg/day, VMA 3.8 mg/day, 17-OHCS 5.1 mg/day, 17-KS 4.1 mg/day であり, 血中と尿中コルチゾールの軽度上昇を認める他はすべて正常範囲内であった。

画像所見: 胸部レントゲンは異常なし。IVPで左腎が腫瘍により下方に圧排されていた。腹部CT (Fig. 1)では, 左後腹膜腔に heterogenous で, 周囲被膜のみ造影される径15cmの腫瘍を認めた。左腎との境界は明瞭であり, 画像上左副腎像を認めなかったため, 左副腎原発の腫瘍と考えた。リンパ節腫脹は認めなかった。腹部超音波では腫瘍内容に低エコーと高エコー部分が混在しており, 嚢胞中に充実性腫瘍の

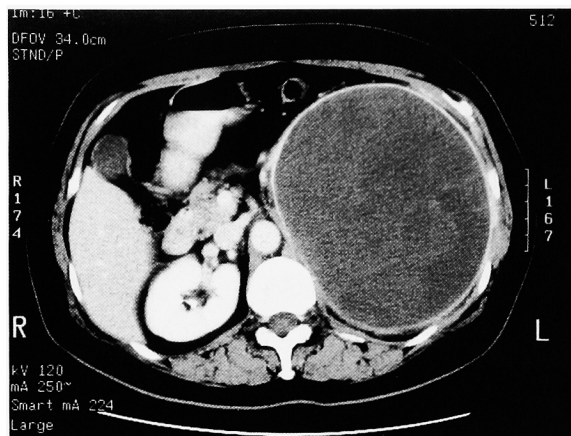


Fig. 1. Enhanced computed tomography shows a left retroperitoneal mass. Only its capsule is enhanced.

存在が疑われた。

入院後経過：入院後連日 38～39℃ の弛張熱を認めた。腫瘍内の感染を考え抗生物質を投与したが無効であり、また血液培養は陰性であった。腫瘍穿刺も考えたが悪性の場合には癌細胞播種の危険があるため施行しなかった。症状から副腎膿瘍の可能性が高かったが悪性も否定できないことから経腹的左副腎摘除術を施行した。

術中所見：腫瘍は周囲臓器と強固に癒着していたが大部分分離可能であった。しかし脾臓は癒着が高度で、浸潤の可能性があったため合併切除した。

病理組織学所見：腫瘍の大きさは 18×14.5×11 cm, 重量は 2,500 g であった。内部は暗褐色膿汁と凝血塊で充満していた (Fig. 2)。弱拡大像 (Fig. 3) では厚い線維性被膜に包まれた血腫であった。強拡大像では線維性被膜内にフィブリン塊や多数の白血球、一部にバクテリアコロニーが認められ感染が起こっていたことを示唆していた。また被膜に接して副腎が存在しさらにここから副腎組織がかなり広い範囲に痕跡的



Fig. 2. Cut surface of the resected specimen showing the dark brown, thrombotic, liquid contents.



Fig. 3. Microscopic appearance of the capsule, which was lined by fibrous tissue without a layer of flattened endothelium.

にみられたため、副腎から生じた腫瘍と考えられた。線維性被膜を裏打ちする内皮細胞または上皮細胞は認めず、腫瘍を疑わせる所見はなかった。以上より診断を感染を伴った出血性副腎偽囊腫とした。

術後経過：直ちに解熱し、倦怠感も消失した。

考 察

副腎囊腫は Foster³⁾ らによれば4型に分けられるとされ、頻度と共に述べると 1) 寄生虫性 7%, 2) 上皮性 9%, 3) 内皮性 45%, 4) 偽囊腫性 39% であった。ところが 1999 年に Neri らは 625 例を集計し、その比率は、1) 寄生虫性 2%, 2) 上皮性 6%, 3) 内皮性 24%, 4) 偽囊腫性 56%, 分類不能 12% であると報告した。本邦で松田らの報告にそれ以降自験例も含めた 53 例を加え、計 174 例で Neri らの分類にしたがうと、1) 寄生虫性 0%, 2) 上皮性 8%, 3) 内皮性 20%, 4) 偽囊腫性 59%, 不明 13% となり、Neri らの比率とはほぼ同様であった。

本症例は囊腫内腔が上皮、内皮に覆われていないので偽囊腫性に属すると思われる。偽囊腫発生の要因として副腎出血後の器質化が挙げられている^{3,4)}。しかし、副腎出血の報告例を調べたところ⁵⁻⁷⁾、出血後の血腫は日数経過と共に縮小しており、吸収されず囊腫として残ったという報告はない。また副腎出血報告例のほとんどが急性腹症などの急性症状を有するが、出血性偽囊腫報告例ではその既往がはっきりしない。すなわち偽囊腫発生が副腎出血に由来するか否かは推測の域を出ないと思われる。Gaffey ら⁸⁾は免疫組織化学染色により、偽囊腫はもともと血管、リンパ管といった脈管由来の囊腫であり、内腔を覆っていた内皮

細胞が外傷などで破綻し瘢痕組織に置き換わったのではないかと推定しているが、いずれにしても現在のところ偽嚢腫発生の病因は不明である。

発見の経緯、症状については疼痛、腹部腫瘍、発熱などで特有ではなく、以前の報告では剖検で見つかった例が多い。近年は検診、他疾患精査などで偶然発見されたものが増加している。発見時年齢は出生前から79歳までで出生前～新生児と30～60歳代に発症のピークがあった。また男女差はほぼ1:2であり、欧米の報告と同じであった。発生部位に左右差は認めなかった。

診断は超音波、CT、MRI等の画像診断によるが、本症例のように出血性のものでは内部が不均一で、また嚢腫被膜に石灰化を伴う率が49%もあることから²⁾、腫瘍性出血との鑑別が難しいとされる。また副腎癌では大きな腫瘍を形成することが多いとされるが、嚢腫でも本邦報告で32 cm⁹⁾、欧米の報告では50 cm¹⁾という超巨大な例が報告されており、大きさは副腎癌との鑑別点にはならない。Hoeffelら¹⁰⁾はガドリニウム造影MRIで腫瘍性出血の鑑別が可能であると報告、また最近では嚢腫穿刺を薦める報告が散見されるようになった。穿刺では悪性の場合播種が心配だが、Neriらによれば副腎嚢腫中、副腎癌が見出された割合はわずかに1% (515例中5例)であり、実際の播種の確率はきわめて低いと考えられる。Sroujehら¹¹⁾は血沈高値、穿刺細胞診、血管造影による腫瘍血管像で悪性との鑑別可能であるとした。また本症例のように感染を伴う副腎嚢腫は本邦では増田ら¹²⁾以降自験例を含め6例を追加すると174例中13例(7%)であり、うち偽嚢腫が12例(1例は不明)であった。このように感染を伴う率は高くないが、穿刺のみでも軽快するとされており、本症例では悪性細胞播種の可能性を考え穿刺はしなかったものの、穿刺により内容物の性状、細胞診、生化学、腫瘍マーカー、細菌培養、嚢腫造影など治療に有用な情報が得られたと考えると穿刺を施行すべきであったかも知れない。

副腎内分泌検査については本邦で副腎嚢腫の4%が褐色細胞腫内の嚢腫形成であることから必須と思われる。ただし穿刺液のホルモン濃度については内分泌非活性でも受動拡散で血中濃度より高く出る可能性があり、著しく高値の場合以外は褐色細胞腫診断の決め手とはならない¹³⁾。もっとも肝嚢胞、脾嚢胞との鑑別診断を要する場合には有用であろう。

治療は造影MRIや嚢腫造影などで腫瘍の存在が疑われる場合、内分泌活性を有する場合、穿刺の結果で内容物が血性の場合、細胞診または腫瘍マーカー陽性の場合¹⁴⁾摘除すべきとされている。ただし偽嚢腫の37%は単純な出血性とされており¹⁾、副腎嚢腫内出血を経過観察したところ腫瘍の縮小をみたという報告も

ある¹⁵⁾。本症例は画像診断にて内部不均一であり悪性腫瘍との鑑別が難しいため摘出術を施行したが、鑑別診断や治療の選択については今後検討の余地があると思われた。

結 語

感染を伴った巨大な出血性副腎偽嚢腫の1例を報告し、若干の文献考察を加えた。

文 献

- 1) Neri LM and Nance FC: Management of adrenal cyst. *Am Surg* **65**: 151-163, 1999
- 2) 松田 彰, 松谷久美子, 国田晴彦, ほか: 副腎嚢腫の1例および本邦121報告例の臨床像の検討. *北海道医協医誌* **20**: 13-22, 1993
- 3) Foster DG: Adrenal cysts: review of literature and report of cases. *Arch Surg* **92**: 131-143, 1966
- 4) 工藤 栄, 宮本一雄, 杉田敦郎, ほか: 副腎偽嚢胞の1症例. *病理と臨* **10**: 945-948, 1992
- 5) 高橋 均, 坂田育弘, 泉本源太鉦, ほか: 外傷性右副腎出血の1症例. *救急医* **13**: 895-899, 1989
- 6) 丹羽篤朗, 隅田英典, 水谷 優, ほか: 急性腹症を呈した巨大後腹膜血腫を形成する副腎出血の1例. *日救急医学会誌* **4**: 256-261, 1993
- 7) 鈴木範宣, 高木良雄, 渡瀬雅裕, ほか: 急性腹症を呈した特発性副腎出血. *臨泌* **50**: 309-311, 1996
- 8) Gaffey MJ, Mills SE, Fechner RE, et al.: Vascular adrenal cysts: a clinicopathologic and immunohistochemical study of endothelial and hemorrhagic (Pseudocystic) variants. *Am J Surg Pathol* **13**: 740-747, 1989
- 9) 鈴木 薫, 黒沢 尚, 藤岡知昭, ほか: 後腹膜漿液性嚢腫の1例. *泌尿器外科* **7**: 1275-1278, 1994
- 10) Hoeffel C, Legmann P, Luton JP, et al.: Spontaneous unilateral adrenal hemorrhage: computerized tomography and magnetic resonance imaging findings in 8 cases. *J Urol* **154**: 1647-1651, 1995
- 11) Sroujeh AS, Farah GR, Haddad MJ, et al.: Adrenal Cysts: diagnosis and management. *Br J Urol* **65**: 570-575, 1990
- 12) 増田 均, 川上 理, 永松秀樹, ほか: 副腎偽嚢腫の1例. *泌尿紀要* **38**: 677-680, 1992
- 13) 増田秀作, 森岡政明, 小松文都, ほか: 副腎嚢腫の1例. *泌尿器外科* **6**: 1249-1252, 1993
- 14) 伊藤哲之, 藤元博行, 大西裕之, ほか: 副腎嚢腫の2例: 画像診断の意義について. *泌尿紀要* **35**: 1161-1166, 1989
- 15) 青木勝也, 高島健次, 平尾和也, ほか: 人工妊娠中絶術後に発症したと考えられる出血性副腎嚢腫: *臨泌* **53**: 151-153, 1999

(Received on August 23, 1999)

(Accepted on January 18, 2000)