

副腎 Myelolipoma の 1 例

和泉市立病院泌尿器科（部長：川喜多順二）

田	中	重	人
梅	田		優
坂	本		亘
川	喜	多	順
松	村	俊	宏

MYEOLIPOMA OF THE ADRENAL GLAND: A CASE REPORT

Shigeto TANAKA, Masaru UMEDA, Wataru SAKAMOTO,

Junji KAWAKITA and Toshihiro MASTUMURA

From the Department of Urology, Izumi Municipal Hospital

(Chief: Dr. J. Kawakita)

A case of myelolipoma of the adrenal gland is reported. The patient was a 50-year-old male who was obese and robust, and complained of right flank pain. Laboratory investigation of adrenal functions were within normal levels. Excretory urography showed a large radiolucent mass in the right upper quadrant, displacing the right kidney to a lower position. Angiography demonstrated a large hypovascular mass. CT scan showed a large mass with low density in the right retroperitoneal space. The tumor was surgically removed through a lumbar incision, and was 800 gm in weight and well capsulated. A pathological study of the tumor disclosed adrenal myelolipoma consisting of mature fat cells and myeloid elements.

Myelolipoma of the adrenal gland is rare and 33 cases of adrenal myelolipoma from the English and Japanese literature including this case were reviewed and analyzed statistically.

Key word: Adrenal myelolipoma

緒 言

副腎myelolipomaは副腎に発生するnonfunctioning benign tumorで組織学的には造血組織と脂肪組織からなり、そのほとんどが剖検で偶然に発見される。今回、われわれは右側腹部痛を呈し、外科的に切除しえた1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：阿○昭○，50歳，男子

初診：1984年4月9日

主訴：右側腹部痛

既往歴・家族歴：特記すべきことなし

現病歴：1984年3月27日，突然右側腹部痛が出現

し，近医受診したところ，排泄性腎盂造影で右腎腫瘍を疑われ，当科を紹介された。

入院時現症：身長 158 cm，体重 64 kg（肥満度＋23％）。胸部理学的所見に異常を認めず。血圧 120/90 mmHg。腹部では右上腹部に表面平滑，弾性軟，呼吸性移動なく，軽度の圧痛をとまなう腫瘤を認める。肝臓，左腎および脾臓は触知しない。外性器，前立腺は視触診上異常を認めず。表在リンパ節は触知しない。

入院時検査成績：

血液像；白血球数 $6,700/\text{mm}^3$ ，赤血球数 $345 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，ヘモグロビン 10.0 g/dl，ヘマトクリット 29.8％，血小板数 $25.5 \times 10^4/\text{mm}^3$ 。

血液生化学；総蛋白 6.6 g/dl，GOT 16 KU，GPT 14 KU，LDH 801 WU，アルカリフォスファターゼ

4.1 KAU, コリンエステラーゼ 0.47 Δ PH, 総ビリルビン 1.02 mg/dl, BUN 15.7 mg/dl, 血清クレアチニン 0.7 mg/dl, 尿酸 5.3 mg/dl, Na 138 mEq/L, K 4.1 mEq/L, Cl 97 mEq/L, Ca 4.1 mEq/L, 血清リン 3.3 mg/dl.

内分泌学検査; 血中アドレナリン 0.01 ng/ml 以下, 血中ノルアドレナリン 0.08 ng/ml, 血中アルドステロン 24 pg/ml, 血中 ACTH 35 pg/ml, 血中コルチゾール 6.9 μ g/dl, 血中 11-OHCS 9.3 μ g/dl, 血中 17-KS 7.7 mg/L, 血中 17-OHCS 9.3 μ g/dl, 尿中アドレナリン 6.1 μ g/day, 尿中ノルアドレナリン 40.1 μ g/day, 尿中アルドステロン 3.3 ng/ml, 尿中 VMA 7.2 mg/day.

尿所見; 肉眼的には黄色清澄, PH 6.0, 蛋白 (-), 糖 (-), 潜血 (-), 沈渣では, 赤血球 0-1/HPF, 白血球 2-3/HPF, 上皮 (-), 円柱 (-), 尿細菌培養陰性.

心電図; 異常所見なし

膀胱鏡検査; 膀胱粘膜, 両側尿管口に異常を認めない.

レ線学的検査; 胸部レ線像に, 異常を認めない. 腎・膀胱部単純レ線像で, 右季肋部に淡い陰影像を認める. 排泄性腎盂造影では両腎とも造影剤の排泄は良好で, 左腎の腎盂腎杯の形態には異常を認めないが, 右腎全体の外側下方向への偏位と上腎杯の圧迫像を認める. 両側尿管走行, 膀胱像は正常である (Fig. 1). 腹部 CT では肝右葉下後方に明瞭な被膜を持つ腫瘍性病変があり, 下大静脈を右側より圧迫している. 右腎は腫瘍により前正中側に圧排されている. 腫瘍の辺縁は平滑鮮明で内部 CT number より脂肪組織と思

われる実質性部分が混在している (Fig. 2). 腹部大動脈造影では hypovascular な直径約 14 cm の球状腫瘍を認め, 腹部大動脈は左方に, 右腎動脈は下方に偏位している (Fig. 3).

腹部超音波検査; 右後腹膜腔内に右腎を下方に圧迫し多彩な echo pattern を示す腫瘍を認め, 内部には壊死を思わせる部分が存在する (Fig. 4).

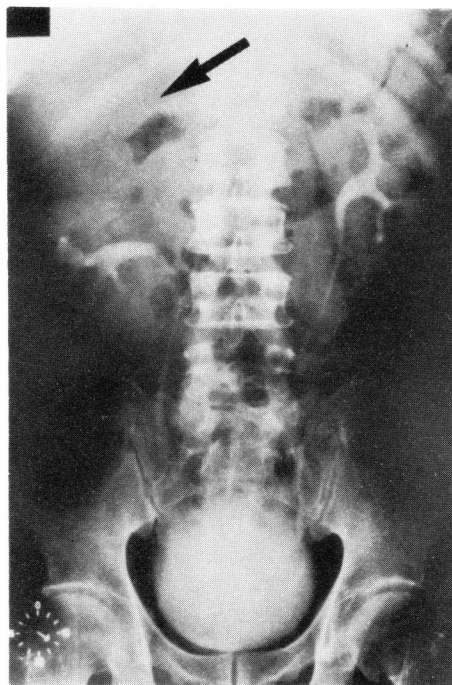


Fig. 1. Preoperative excretory urography shows relatively radiolucent mass at upper pole of right kidney that is displaced to inferior.

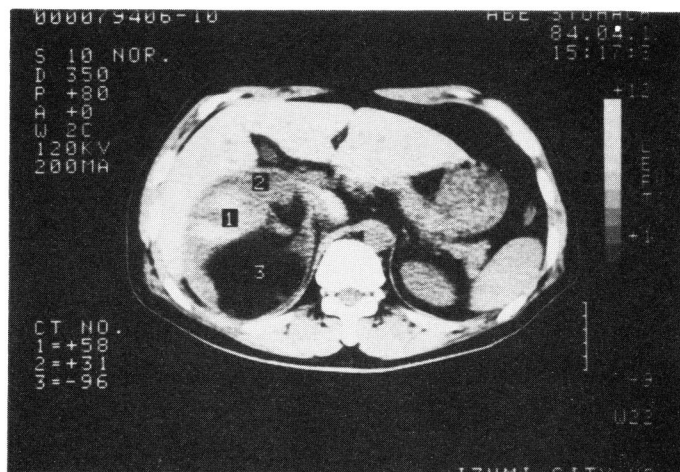


Fig. 2. Computed tomogram demonstrates a large nonhomogeneous mass just above the right kidney.

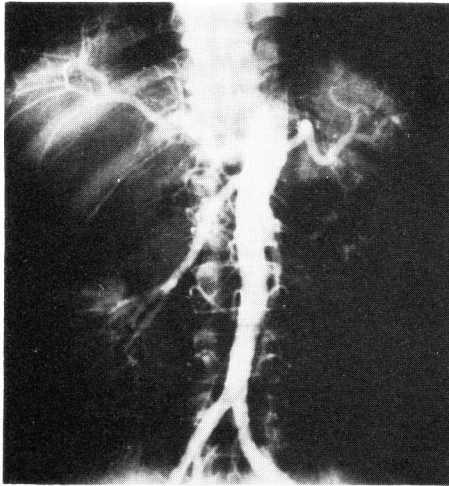


Fig. 3. Abdominal aortogram shows radiolucent mass above right kidney displacing it to inferior.

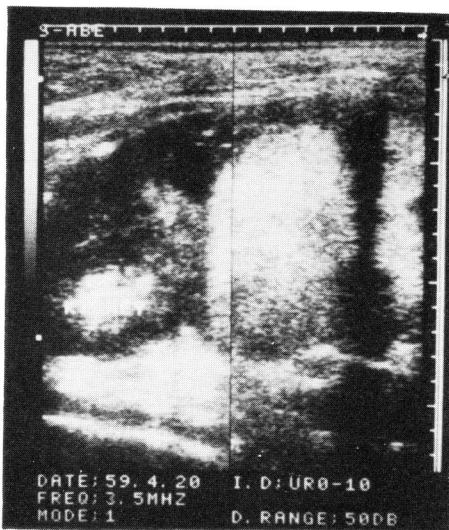


Fig. 4. Sagittal ultrasonogram of right upper quadrant shows markedly echogenic mass displacing right kidney inferiorly.

手術所見：以上の検査所見より後腹膜腫瘍の診断の下に、長径 14 cm の巨大腫瘍のため悪性の可能性も否定できず、1984年4月26日、全身麻酔下に腫瘍剔除術を施行した。腰部斜切開にて後腹膜腔に達すると境界明瞭な被膜を有する小児頭大の腫瘍が、肝右葉の下面と右腎上極、下大静脈に接して存在していたが右腎との癒着が強く、腫瘍を右腎とともに剔除した。

術後経過：術後の経過は良好で、手術後40日目に退院した。

剔除標本肉眼的所見：剔除標本は Fig. 5 に示すご

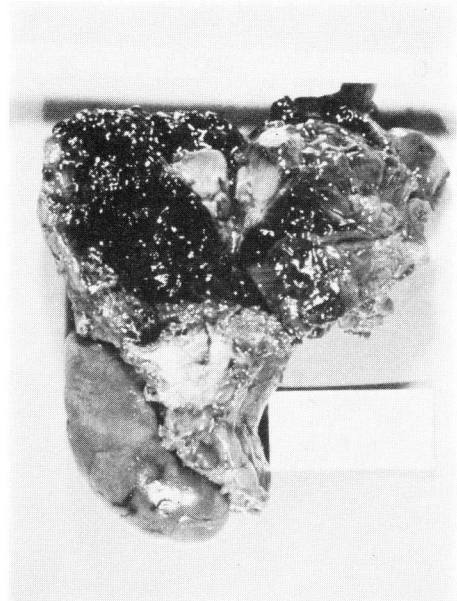


Fig. 5. Cut section of adrenal tumor with right kidney below.

とく、大きさ $14 \times 13 \times 8$ cm、重さ 800 g の赤褐色のやわらかい腫瘍で、表面は平滑であった。剖面では、外側は脂肪組織よりなり、中心部は脂肪壊死巣と凝血塊で占められていた。

病理組織学的所見：腫瘍は硝子化傾向の強い線維被膜に覆われており、内部は分化成熟した脂肪組織と骨髓造血組織類似の細胞集団が混在しており、ところどころに圧排されているが、正常構造を保つ副腎皮質組織が散在していた (Fig. 6, 7)。以上の所見より副腎皮質に発生した myelolipoma と診断した。

考 察

副腎の myelolipoma は非常にまれな良性腫瘍で成熟した脂肪組織と骨髓様組織よりなる非機能性腫瘍である。そのほとんどは剖検で偶然発見されるが、臨床症状を呈し、外科的に剔除した症例は欧米では 27 例 (Table 1)¹⁾、本邦では自験例を含め 8 例 (Table 2)^{2)~8)} である。年齢分布は 20 歳から 72 歳であるが、平均年齢は男子 48.6 ± 11.3 歳、女子 53.6 ± 8.7 歳 (mean $\pm$ SD) と女子がわずかに高齢となっている (Fig. 8)。性別分布は男子 22 例、女子 13 例と男子に優位である。患側は右側 16 例、左側 18 例、両側 1 例とくに左右差は認めない。身体的特徴の記載のある 23 例中 17 例が肥満体であり、また血圧の記載のある 21 例中 10 例に高血圧症が認められ、本疾患は肥満、高血圧と関連性をもつと思われる。主訴は Fig. 9 に示すごとく疼痛

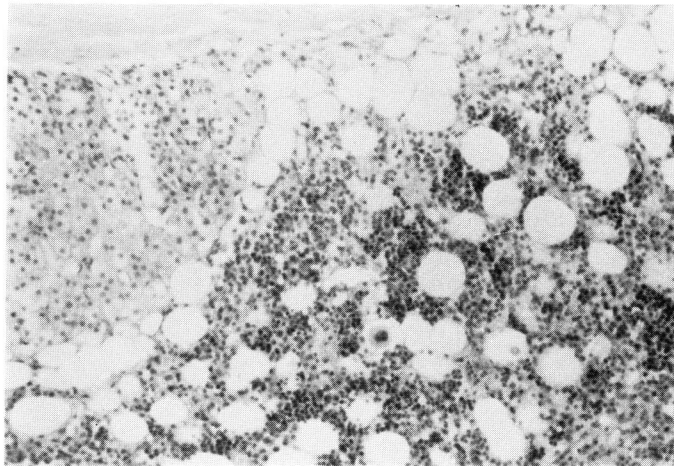


Fig. 6. Normal adrenal cortex adjacent to myelolipoma which consists of adipose and hemopoietic tissue (H&E, $\times 100$).

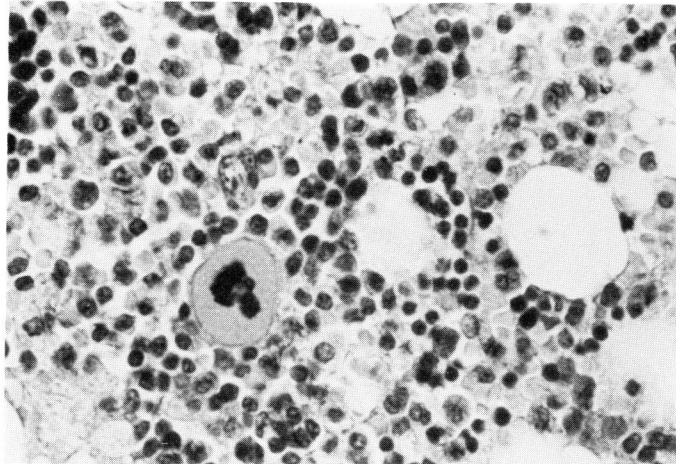


Fig. 7. High-power microgram demonstrates various bone marrow elements, most notably megakaryocytes and nucleated red blood cells (H&E, $\times 400$).

が37%と最も多く、ついで血尿、腹部腫瘍となっている。疼痛の原因として、腫瘍組織内の出血あるいは壊死によるものと考えられる。剔出標本の重量は50 g から 5,000 g (平均 1,318 g)、長径は 6 cm から 25 cm (平均 14.0 cm) と通常大きい腫瘍が形成される。Myelolipoma は一般に血液および尿の生化学的検査になら異常を示さない nonfunctioning tumor であるため、術前に正確に診断することはほとんど不可能である。しかし近年、諸種の検査法の発達により無症状の adrenal myelolipoma の発見例が増加しつつある。排泄性腎盂造影では季肋部に radiolucent な陰影を認め、腫瘍による腎の偏位が認められることもある。また腫瘍部分に一致して石灰化がみられるこ

ともあるが、これは腫瘍組織内の出血あるいは壊死による二次的な石灰化と考える。血管造影では、腫瘍は一般に hypovascular を示す。腹部超音波検査は充実性の腫瘍で、内部に壊死を思わせる囊胞様を呈する部分が認められる。腹部 CT では腫瘍は low density であるがところどころ不規則な high density な部分が認められる。Rubin ら⁹⁾ は血管造影で悪性を思わせる腫瘍血管を描出せず、石灰化をともなった腎上部の放射線透過性の良い腫瘍を発見した場合は、myelolipoma を鑑別診断に入れることを提唱している。本症の発生原因は現在のところいまだ不明であるが (1) 髓外造血、(2) 骨髓組織の塞栓、(3) metaplasia、(4) 胎生期遺残骨髓組織、など種々の説が唱えられてい

る. もっとも有力な学説として Plaut¹⁰⁾ は 100 例の myelolipoma の中で 9 例に Cushing's disease, Addison's disease, pseudohermaphroditism, 高度の肥満などなんらかの内分泌学的異常がみられたことよ

り, 長期にわたる内分泌学的異常により, 副腎皮質がなんらかの刺激を受けて metaplasia が形成されるのではないかと述べている. この metaplasia を起こす原因として Selye & Stone¹¹⁾ は過剰な stress による corticotropin の過剰生産が刺激となるとしており, Olsson ら¹²⁾ は, 高血圧や肥満が組織壊死をきたしやすいことよりこれらの壊死物質が誘因となるとしている. 以上, adrenal myelolipoma の発生原因はいまだ不明の点が多いが, 今後の研究による解明が待たれる.

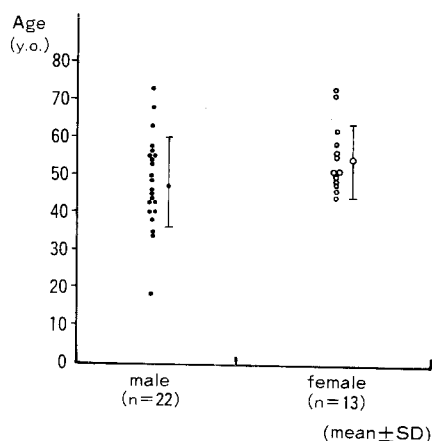


Fig. 8. Age and sex distribution of patient with surgically removed adrenal myelolipoma (1957~1984, 35 cases)

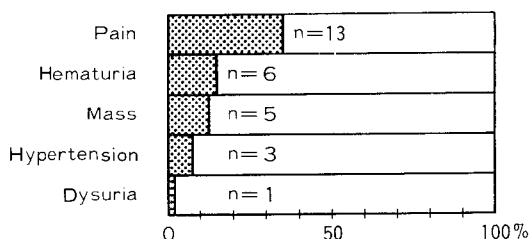


Fig. 9. Chief complaints in adrenal myelolipoma

Table 1. Surgically removed myelolipomas in English literature

No.		Age (yr.)	Sex	Side	Body habitus	Blood pressure (mm Hg)	Presenting symptoms	Specimen (g)	Maximum diameter of measurement (cm)
1	Dyckman and Freedman	47	M	Rt.	—	116/94	Pain	1100	16
2	Parsons and Thompson	51	F	Rt.	Obese	140/90	Pain	1250	25
3	Figuerola and Tedeschi	61	F	Rt.	—	—	Pain	?	?
4	Engelking et al.	63	M	Rt.	Obese	—	Hematuria	?	10
5	Newman and Silen	41	M	Lt.	Robust	140/90	Pain	?	18
6	Whittaker	57	F	Lt.	Obese	154/98	Pain and microhematuria	?	7
7	Tulcinsky et al.	53	M	Rt.	Well nourished	190/120	Hematuria	850	20
8	Olsson et al.	44	M	Lt.	Obese	180/90	Hematuria	440	—
9	Gee et al.	43	M	Rt.	Obese	180/126	Hypertension	312	7.5
10	Rubin et al.	49	M	Rt.	Well developed	155/100	Pain	50	6
11	Snearly et al.	46	F	Lt.	Obese	120/70	Pain	140	8
12	Desai et al.	54	M	Lt.	Obese	130/70	Microhematuria	360	10.5
13	Boudreaux et al.	57	M	Lt.	Obese	—	Pain	5900	24
14	Bosniak et al.	43	F	Rt.	—	Elevated	Hypertension	?	?
15	Behan et al.	47	F	Rt.	Obese	—	Pain, mass	?	11
16	Behan et al.	55	M	Lt.	—	—	Dysuria	?	6
17	Scheible et al.	72	M	Rt.	—	—	?	?	6
18	Ayyat et al.	47	F	Rt.	Obese	170/95	Pain	?	7
19	Noble et al.	57	M	Lt.	Obese	100/70	Hematuria	?	6
20	Noble et al.	52	F	Lt.	Obese	130/90	Pain	145	8
21	Noble et al.	43	M	Lt.	Well nourished	210/130	Hypertension	?	8
22	Wilhelmus et al.	70	F	Lt.	Obese	180/100	Pain	5500	30
23	Bennett et al.	39	M	Lt.	—	—	Cushing's syndrome	1590	20
24	Fink et al.	45	F	Lt.	—	—	Pain	?	12
25	Fillobbos et al.	37	M	Lt.	Well developed	—	Pain	2250	27
26	Fudge et al.	71	F	Lt.	—	174/100	Pain	253	12
27	Damjanov et al.	68	M	Lt.	—	150/96	Nephrose syndrome	820	15

† Modified from Table I in the review of Noble et al.

Table 2. Surgically removed myelolipomas in Japan

No.		Age (yr.)	Sex	Side	Body habitus	Blood pressure (mm Hg)	presenting symptoms	Specimen (g)	Maximum diameter of measurement (cm)
1	Nouchi and Sugano	55	M	Lt.	Robust	100/70	Mass	500	14
2	Shirasaka et al.	51	F	Rt.	—	—	Mass	1200	—
3	Toshin et al.	56	F	Lt.	Obese	—	—	1930	—
4	Tukaguchi et al.	41	M	Rt.	—	—	—	1700	—
5	Ishikawa et al.	20	M	Rt.	—	156/100	Pain	150	—
6	Kana ji et al.	36	M	Rt.	Obese	—	Pain	1230	16
7	Kamiryo et al.	45	M	Bil.	Obese	120/90	Mass	Rt. 1950 Lt. 1219	21 20.5
8	Present case	50	M	Rt.	Obese	120/90	Mass	800	14

結 語

50歳, 男子, 右側腹部痛を主訴とした副腎 myelolipoma の 1 例を報告するとともに, 臨床症状を呈し外科的に剔除された英文報告 27 例, 本邦報告 8 例を集計し若干の文献的考察を加えた。

本論文の要旨は第 108 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) Noble MJ: Myelolipoma; An unusual surgical lesion of the adrenal gland. *Cancer* **49**: 952~958, 1982
- 2) 野内文雄・菅野孝一: 副腎に発生した巨大な Myelolipoma の 1 例. *福島医学* **10**: 455~465, 1960
- 3) 白坂祥三・樋口健四郎・佐々木大輔・田村和民・川上 澄: Myasthenia gravis を伴った副腎原発の Myelolipoma の 1 例. *日内会誌* **64**: 283~284, 1975
- 4) 当真嗣裕・斉藤 隆・大久保嘉明・大和田文雄・栗林宣雄: いわゆる副腎 Myelolipoma の 1 手術例. *日泌尿会誌* **69**: 501, 1978
- 5) 塚口 功・佐藤健司・小原秀一・古出雄三・門脇

照雄: 術前に診断し得た 副腎 Myelolipoma の 1 例. *日医放線会誌* **39**: 1128~1129, 1979

- 6) Ishikawa H, Tachibana M, Hata M, Tazaki H, Akatsuka S and Iri H: Myelolipoma of the adrenal gland. *J Urol* **126**: 777~779, 1981
- 7) 金地嘉春・鬼塚正孝・相古悠治・金沢暁太郎・樫村博正・中原 朗・崎田隆夫: 副腎 Myelolipoma の 1 例. *ホルモンと臨床* **30**: 1101~1104, 1982
- 8) 上領頼啓・平尾 博・江本 勲・谷 茂樹: 副腎 Myelolipoma の 1 例. *臨泌* **38**: 417~420, 1984
- 9) Rubin HB: Myelolipoma of the adrenal gland; Angiographic findings and review of the literature. *Am J Surg* **130**: 354~358, 1975
- 10) Plaut A: Myelolipoma in the adrenal cortex. *Am J Pathol* **34**: 483~515, 1958
- 11) Selye H and Stone H: Hormonally induced transformation of adrenal into myeloid tissue. *Am J Pathol* **26**: 211~225, 1950
- 12) Olsson CA, Krane, RJ, Klugo RC and Selikowitz SM: Adrenal myelolipoma. *Surgery* **73**: 665~670, 1973

(1985年2月20日受付)