

副腎嚢腫の2例 画像診断の意義について

京都大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 吉田 修教授)

伊藤 哲之, 藤元 博行, 大西 裕之, 荒井 陽一

西村 一男, 西尾 恭規, 竹内 秀雄, 吉田 修

TWO CASES OF ADRENAL CYSTS—THE MEANING OF IMAGING IN DIAGNOSING ADRENAL CYSTS

Noriyuki ITO, Hiroyuki FUJIMOTO, Hiroyuki ONISHI,

Youichi ARAI, Kazuo NISHIMURA, Yasunori NISHIO,

Hideo TAKEUCHI and Osamu YOSHIDA

From the Department of Urology, Faculty of Medicine, Kyoto University

Two cases of adrenal cysts are reported. The first case is of a left adrenal cyst in a 19-year-old woman and was incidentally discovered by computed tomography (CT). Its margin was clear, its contents was homogeneous and its signal indicated water contents on magnetic resonance imaging (MRI). It was punctured and is now followed up by CT. The second case is of a left adrenal cyst in a 62-year-old woman, which also happened to be discovered by CT. Its contents was heterogeneous by MRI. It was removed and proved to be a lymphangiomatous cyst. The conclusion is that MRI will be useful in the differential diagnosis of adrenal cysts.

(Acta Urol. Jpn. 35: 1161-1166, 1989)

Key words: Adrenal cyst, Differential diagnosis, MRI

緒 言

副腎嚢腫は比較的稀な疾患とされてきたが近年になって画像診断の発達とともに偶然発見される機会が増えている。副腎嚢腫は過去においては全例摘出されたが、最近では穿刺されることが多い。最近われわれはMRIを用いた検査により、取り扱いをまったく異にした2例を経験したので画像診断を中心に若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1: 19歳, 女性

主訴: CTにて偶然発見された後腹膜腫瘍

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 生来健康であったが, 1988年3月健診にて血清 amylase 高値を指摘され本院内科を受診。超音波断層法にて腎腫瘍を疑われ, 1988年6月4日精査目的にて当科受診す。

入院時現症: 身長 165.5 cm, 体重 61.5 kg, 血圧 110/65, 脈拍整。

入院時検査成績: 血液一般, 生化学検査, 尿検査に

異常認めない。内分泌学的検査: 血中 DOC 0.26 ng/ml (血清正常値 0.02~0.2 ng/ml) 以外, adrenaline, noradrenaline, dopamine, corticosterone, ACTH, DHEA, 血中 VMA, 17O HCS, 17 KS すべて正常であった。

画像診断: DIPにて左腎の位置, 輪郭は正常で腫瘍は認められない。超音波断層法では左副腎に一致して posterior enhancement をもつ内壁整で homogeneous hypoechoic mass を認める。副腎センチにおいては左副腎の集積はほとんどなく, 非機能性副腎腫瘍と思われた。CTにおいては内容が homogeneous で low density な腫瘍を認め, その辺縁は一部不明瞭であった。enhanced CTでは辺縁のみがはっきりと enhance され被膜の存在が推測された (Fig. 1)。

MRIにおいては, 肝と比較して, T1 weighted image (以下, T1-WI と略す) で low, T2 weighted image (以下, T2-WI と略す) で high intensity の腫瘍が認められ, 境界は明瞭で内容は homogeneous であった (Fig. 2, 3)。

以上より, 副腎嚢腫の診断のもと, 1988年8月19日

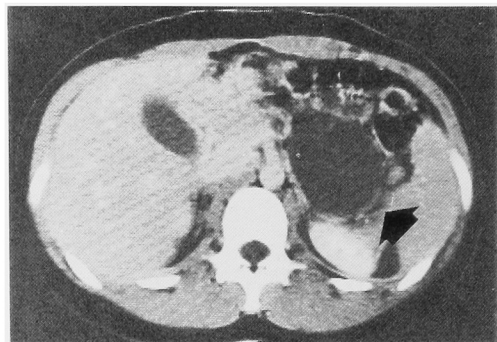


Fig. 1. Enhanced CT indicates the existence of capsule surrounding cystic mass.

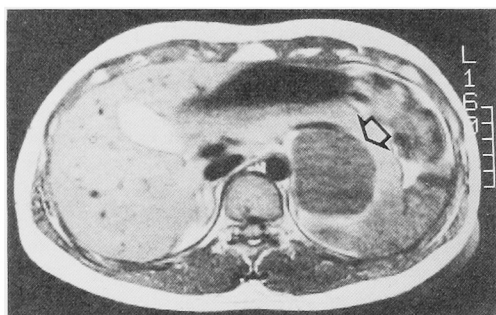


Fig. 2. MRI:T1-WI shows homogeneous low intensity mass.

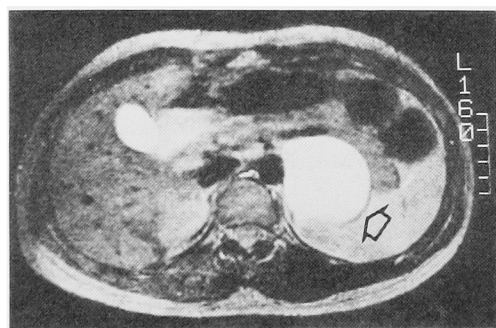


Fig. 3. MRI: T2-WI shows homogeneous high intensity mass.

エコーガイド下に嚢腫穿刺を施行し、黄色透明の液を 70 ml 吸引した。穿刺液の腫瘍マーカーは AFP, CEA, PAP は陰性であり、その cytology は class 1 であった。内容液の生化学検査では、amylase が 556 IU/l (血清正常値 250~440 IU/l) とわずかに高値であった。

内分泌学的検査では aldosterone 1265.9 pg/ml, (血清正常値 47~131 pg/ml) DOC 13.400 ng/ml, (血清正常値 0.02~0.2 ng/ml) metanephrine 1.00 mg/l (血清正常値 0.01~0.13 mg/l) corticosterone

56.1 ng/ml (血清正常値 1~10 ng/ml) pregnenolone 24.2 ng/ml, (血清正常値 0.2~1.5 ng/ml) と高値を示し、副腎原発であることが示唆された。穿刺後合併症なく、現在無症状で外来にて経過観察中である。

症例 2 : 61歳, 女性

主訴 : CT にて偶然発見された後腹膜腫瘍

既往歴・家族歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 1988年 3月より全身倦怠感。13日より38度の発熱が3日間持続したため、某院入院。精査にて胃潰瘍、胆石、両側腎結石および CT にて左副腎腫瘍を指摘され、精査治療目的にて当科を紹介された。

入院時現症 : 身長 147 cm, 体重 49 kg, 血圧136/84, 脈拍72整, 胸腹部に理学的異常所見なし。

入院時検査成績 : 血液検査 ; WBC 3400, RBC 34.5万, Hb 9.9 g/dl, Ht 30.1%, Plt 22.8万と軽度の貧血を認める他は血液一般、生化学検査に異常がない。尿検査 ; 潜血 (+) 糖 (-) pH7, 沈渣 ; WBC 5~8/hpf, RBC 25~30/hpf, 結晶 (+), 円柱 (-), 細菌 (-), 内分泌検査 ; 血中 cortisol 16.3 μ g/dl, (正常値 5.0~16.0 μ g/dl) がわずかに高値を示す以外は aldosterone, corticosterone, DOC, DHEA, angiotensin II, 尿中 adrenaline, noradrenaline, 17O HCS, 17 KS, VMA, デキサメサゾン抑制試験, すべて正常であった。

画像診断 : KUB, DIP において両側サンゴ状結石と胆石が認められた。左腎は右腎に比べてやや低位置にあるが明らかな腫瘍は認められない。plain CT に

において腫瘍内容は low density であったが一部 heterogeneous な部分を認めた。また enhanced CT では内容が一部 enhance される部分を認めた (Fig. 4)。超音波断層法では副腎に一致して内壁が整な cystic な像が認められた (Fig. 5)。副腎シン

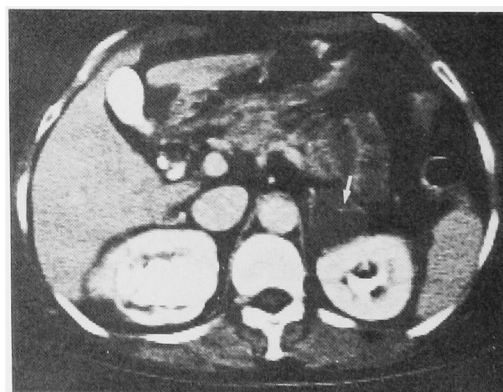


Fig. 4. Enhanced CT shows heterogeneous mass, part of which is enhanced.

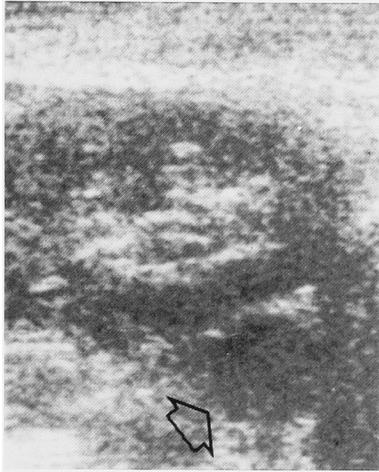


Fig. 5. Ultrasonography shows homogenous cystic mass

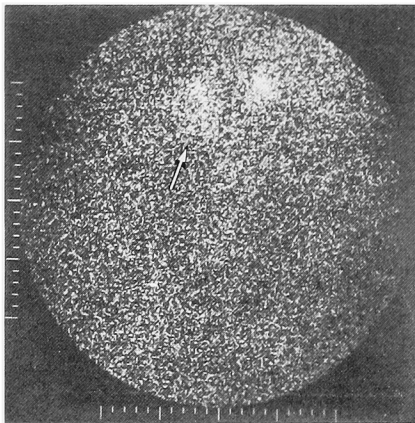


Fig. 6. Adrenal scintigraphy indicates the enlargement of adrenal uptake due to the compression of mass from inside.

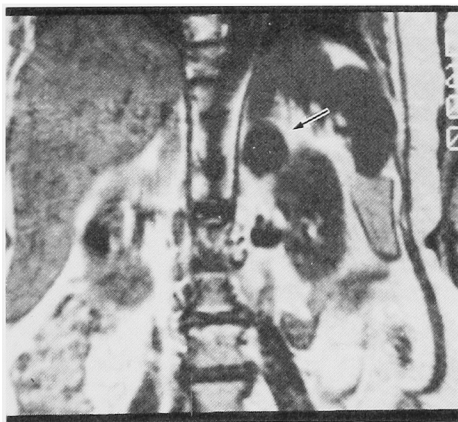


Fig. 7. MRI: T1-WI in the coronal plane shows low intensity mass separated from the kidney.

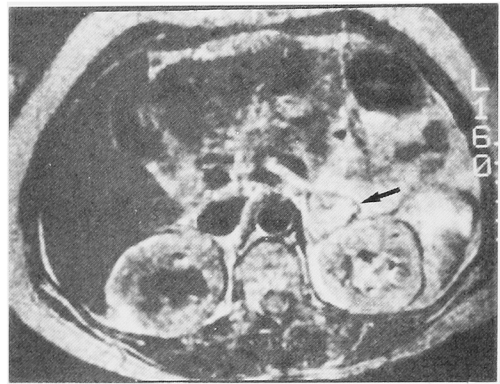


Fig. 8. T2-WI shows heterogeneous high intensity mass.

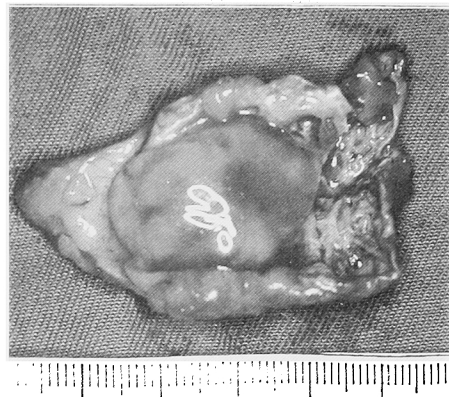
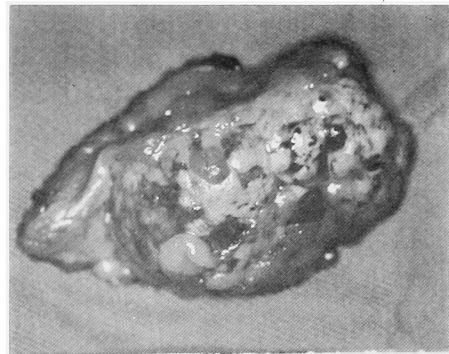


Fig. 9. A: Gross appearance of the resected specimen
B: Inside view specimen reveals polyfollicular cysts. Contents is 5 ml lucent liquid and 2 ml gel.

チでは、左副腎像は著明に拡大しており腫瘍による圧排が考えられたが、両側副腎の集積は正常であった (Fig. 6).

MRI においては、腫瘍は T1-WI において肝と比べて low intensity (Fig. 7), T2-WI において high

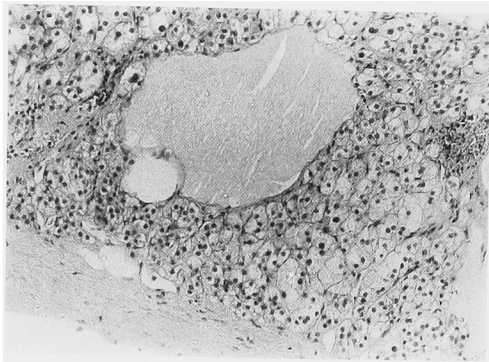


Fig. 10. Photomicrograph of specimen shows that the wall of some of the cysts are lined by the endothelial cells

intensity (Fig. 7), 内部は heterogeneous で一部比較的 low intensity の部分も見られた (Fig. 8). 腫瘍はとくに冠状面において腎, 脾臓と明瞭に区別できた.

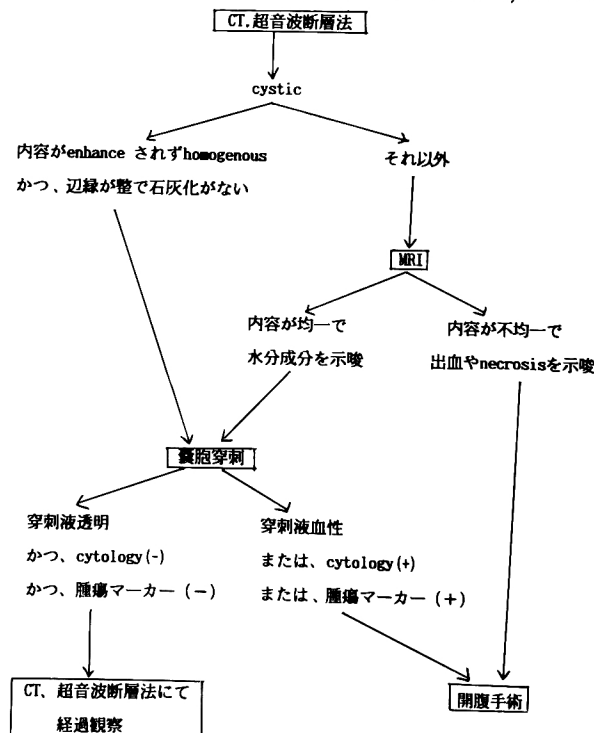
以上より, 左副腎嚢腫, あるいは左副腎腫瘍の診断で, 1988年6月17日左副腎摘出術と左腎切石術を施行した. 表面に一部黒褐色の沈着を伴う $5 \times 4 \times 3$ cm の黄色調の嚢腫が認められた. 内容は約 5 ml の透明な液のほかにゼラチン様物質が 2 ml 存在した. 断面には多数の嚢胞が認められた (Fig. 9).

病理所見: 組織学的には副腎内に多数の嚢胞が存在し, 内腔は一層の扁平な内皮によって覆われ蛋白性溶液を内容としている部分を認めた (Fig. 10). 以上の所見よりリンパ管腫性副腎嚢腫と診断した. 内容液およびゼラチン様物質中のホルモンは, それぞれ adrenalin 106110, 2504 pg/ml (156 pg/ml 以下), cortisol 217.2, 330.2 μ g/dl (5.3~24.5 μ g/dl), aldosterone 4000, 4000 pg/ml (47~131 pg/ml) と高値を示した. CEA, AFP, CA19-9 は陰性であった. 術後は順調に経過し, その後右腎結石にたいし ESWL を施行した.

考 察

副腎嚢腫は比較的稀な疾患とされてきたが画像診断学の進歩により偶然に発見される機会が増えてきている. わが国においては1984年諸角¹⁾が本邦63例を報告したが, われわれの集計しえたかぎりでも自験例を含め86例, リンパ管腫性嚢腫として20例の報告がある. 1951年 Wahl²⁾によれば14000の剖検例にて0.06%の頻度であったとしている. 1966年 Foster³⁾らは手術例, 剖検例を合わせて220例の検討を行ない, その発症は生後から76歳まであらゆる年齢層に及び, 頻度は50~60歳に多く男女比は3:1で女性に多いとして

Table 1. Treatment of hormonal inactive adrenal cystic lesion



いる。組織学的には parasitic cyst (7%), epithelial cyst (9%), endothelial cyst (45%), pseudocyst (39%) に分類し, さらに epithelial cyst を true grandular cyst, embryonal cyst, cystic adenoma に, endothelial cyst を lymph-angiomaticous cyst (42%), angiomaticous cyst に, pseudocyst を正常副腎組織由来の出血によるものと腫瘍を伴ったものとに細分化している³⁾。最も一般的な二つのタイプである lymphangiomaticous cyst と pseudocyst の鑑別診断として, 前者は一層の扁平な内皮によって覆われているが, 後者は覆われていないこと, 前者は内容物が milk 状で多胞性のものが多いが, 後者は内容物が赤褐色で単胞性のものが多いことなどが考えられている。しかし pseudocyst の少なくともいくらかは vasucular origin で, endothelium に覆われているという報告がある⁴⁾。

副腎嚢腫の臨床症状としては, (1) 副腎部鈍痛, (2) 胃腸症状, (3) 腫瘍触知, が挙げられているが, 近年発見されるのはほとんどが無症候性で CT, 超音波断層法などで偶然発見される例が多いようである。高血圧との関係はわれわれの調べたかぎりでは明らかな因果関係はなかった。副腎嚢腫内溶液のホルモン活性の高値の原因については, 1978年 Jacobi ら⁵⁾によると周囲組織からの受動的拡散によると報告されているが, 本症例を含め本邦12例のうち11例において cortisol, aldosterone, catecholamine の少なくともいずれかのホルモン活性が上昇している⁶⁻⁸⁾。このことは, 嚢腫内溶液のホルモン活性を測定することが嚢腫の origin の検索に有用であることを示していると思われる。

副腎嚢腫の画像診断は今まで, 超音波断層法, CT, angiography, venography, IVP, 副腎シンチ等が行われてきた。超音波断層法においては, 内壁整の内部エコーのない posterior enhancement をもつ像が典型的である。CT においては辺縁が整で内容が homogeneous な water density で enhance されないのを特徴とする。しかし出血, 石灰化や他の内容物によって density は変化することがあり, 例えば脂肪を多く含んだような solid mass との鑑別は難しい⁹⁾。石灰化は, 良性嚢腫11例のうち6例に見られたという報告があり必ずしも悪性腫瘍を示唆しない¹⁰⁾。arteriography, venography は嚢胞の存在とその origin を示唆するが, neovasucularization や AVshunt は adenoma, carcinoma とともに存在する場合もあり, また, 無い場合もある¹¹⁾ので, その侵襲に比べて得られる情報は少ないと考えられる。副腎シ

ンチにおいては, CT における腫瘍の位置に一致して集積の減少があるという報告¹²⁾が多いが, 症例2のように全体的に圧排された結果, 副腎像の拡大として捕えられることもある。MRI では辺縁が整, 内容が homogeneous で T1-WI で low, T2-WI で high に映るとされている^{13,14)}。

最近になって, MRI によって副腎腫瘍の質的診断が, 肝を基準に intensity を補正することにより可能であるという報告が数多く見られてきた³⁻¹⁵⁾。Renig ら¹³⁾は T2-WI において肝と比較して腺腫は low, 転移性腫瘍と癌は intermediate, pheochromocytoma は high intensity を示すとしている。また Falk ら¹⁴⁾は, hemorrhagic cyst では T1-WI, T2-WI, とともに high であると報告している。このように MRI は腫瘍内容の判定に有効であると思われる。また, 解剖学的診断においても, MRI は冠状, 矢状面の撮影が可能な上, 軟部組織, 特に後腹膜脂肪組織との区別が明瞭であり¹⁶⁾, origin の検索のみならず周囲との癒着の有無等手術にむけて得られる情報は多い。今回の症例2のように, 壁の整, 不整の判断においても CT を凌駕すると思われた。

最近, 副腎の嚢胞性疾患は穿刺される機会が増えてきている。しかし副腎嚢胞を合併する疾患として pheochromocytoma¹⁷⁾ 以外に neuroblastoma¹⁸⁾ の報告がある。また Michal ら¹⁹⁾は arteriography において嚢腫と診断された cystic adrenal carcinoma と, 超音波断層法と arteriography により嚢腫と診断された solid necrotic adrenal carcinoma を報告している。さらに穿刺液が透明であれば良性であるとする説¹¹⁾の根拠の無さも指摘している。悪性腫瘍であった場合穿刺による播種の可能性を否定できない現在, 安易に穿刺を行なう前に画像診断による十分な術前診断が重要であると思われる。われわれは, 内分泌不活性の副腎嚢胞性疾患の diagnostic tree を Table 1 のように考えている。症例1においては超音波断層法, CT において辺縁のみが enhance され内容は homogeneous であったが一部辺縁が不明瞭な部分を認めたため念のため MRI を施行した。腫瘍は homogeneous で内容は明らかに水分成分を示唆したため, 悪性の可能性はないと考え穿刺を施行した。症例2においては, やはり超音波断層法, CT において cystic であったが, 一部 enhance される部分を認め境界は不明瞭で内容は heterogeneous であったため MRI を施行した。腫瘍は内部に明らかに intensity の異なった部分があり, 水以外の成分も示唆されたため悪性の可能性を否定できず開腹手術を施行

したのである。

副腎の嚢胞性疾患に対する治療方針は現在まだ一定の見解は定まっていない。副腎の悪性疾患は非常に稀であるということから考えて、全例開腹手術というのは当然妥当ではない。しかも穿刺の安全性と確実性が保証されていない現在、画像診断による質的診断がますます重要になってきている。しかし従来の検査では腫瘍の質的診断は十分でない。MRI に関する経験はまだ少ないが、今後経験を重ねることによって副腎嚢腫の質的診断が更に正確になることが期待できると思われる。また、surface coil²¹⁾、Gd-DTPA の使用²¹⁾ % contrast value の概念の導入²²⁾なども今後考えてゆくべきであろう。

結 語

取り扱いのまったく異なった副腎嚢腫の2例を報告した。症例1は画像診断において悪性を否定しえたため穿刺を施行し、症例2は否定しえなかったため開腹手術を施行した。画像診断とその取り扱いについて若干の文献的考察を加えた。

なお本論文の要旨は第124回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

文 献

- 緒角誠人, 高橋茂喜, 宮崎尚文, 引地 功, 小川由英, 北川龍一: 副腎嚢腫の1例. 泌尿紀要 30: 907-911, 1984
- Wahl HR: Adrenal cysts. Am J Pathol 27: 758, 1951
- Foster DG: Adrenal cyst: review of literature and report of cases. Arch Surg 92: 131-143, 1959
- Groben PA, Robercon JB, Askin FB, Price WG and Siegal GP: Immunohistochemical evidence for the vascular origin of primary adrenal cyst. Arch Pathol Lab Med 110: 121-123, 1986
- Jacobi JD, Carballeira A and Fishman LM: Adrenal cyst: hormonal contents and functional evaluation. Acta Endocrinol 88: 347-353, 1978
- 寺地敏郎, 寺井章人, 町田修三, 大森孝平: 副腎嚢腫の2例. 泌尿紀要 32: 1497-1503, 1986
- 松木 尚, 妻谷 憲一, 植村天受, 田畑尚一, 三馬省二, 生間昇一朗, 平尾 彦, 岡島英五朗: 副腎嚢腫の1例. 奈医誌 37: 35-41, 1986
- 丹治 進, 川村繁美, 高田 耕, 吉田郁彦: 副腎嚢腫の1例. 193回東北地方会: 1985
- Johnson CD, Baker MK and Dunnick NR: CT demonstration of an adrenal pseudocyst. J Computer Assist Tomogr 9: 817-819, 1985
- Kearney GP, Mahoney EM, Maher E and Harrison JH: Functioning and nonfunctioning cysts of the adrenal cortex and medulla. Am J Surg 134: 363-368, 1977
- Copeland PM: The incidentally discovered adrenal mass. Ann Intern Med 98: 940-945, 1983
- Francis IR, Smid A, Gross MD, Shapiro B, Naylor B and Glazer GM: Adrenal masses in oncologic patients: functional and morphologic evaluation. Radiology 166: 353-356, 1988
- Renig JW, Doppman JL, Dwyer A and Frang J: MRI of indeterminate adrenal masses. AJR 147: 493-496, 1986
- Falk HM, Bloem JL, Strake L, Seters AP, Sandler MP, Pqrtrain CL, Sheff MI, James AE, Page DL and Bluemm RG: Magnetic resonance imaging of adrenal glands. Radiographics 7: 343-370, 1987
- Glazer GM, Woolsey EJ, Borrell J, Francis IR, Aisen AM, Bookstein F, Amendola MA, Gross MD, Bree RL and Martel W: Adrenal tissue characterization, using MR imaging. Radiology 158: 73-79, 1986
- Moon KL, Hricak H, Crooks LE, Gooding CA, Moss AA, Engelstad BL and Kaufman L: Nuclear magnetic resonance imaging of adrenal gland: a preliminary report. Radiology 147: 155-160, 1983
- 内田克紀, 矢崎恒忠, 友 政宏, 石川博通, 加納勝利, 小磯謙吉: 無症候性多嚢胞性副腎褐色細胞腫の一例. 西泌尿 49: 215-219, 1987
- 三橋将人, 富沢 滋, 黒梅恭芳, 平敷敦子, 松山四郎, 渡部岩吉: 巨大な副腎嚢腫を呈した神経芽細胞腫の一例. 小児科臨床 33: 271-275, 1980
- Michal MB, Baranetsky N and Boxel PJ: Adrenal "incidentalomas" Urology 25: 1-7, 1985
- White EM, Edelman RR, Stark DD, Simeone JF, Mueller PR, Brady TJ, Wittenberg J, Buchi RJ and Ferrucci JT: Surface coil MR imaging of abdominal viscera. Radiology 157: 431-436, 1985
- 岸 洋一, 鈴木 誠, 東原英二, 梅田 隆, 新島端夫: 副腎疾患の MRI の診断. 日泌尿会誌 78: 2016-2022, 1987
- Nishimura K, Hida, S, Okada, K and Yoshida, O: Staging and differential diagnosis of renal cell carcinoma: a comparison of magnetic resonance imaging and computed tomography. Acta Urol Jpn 34: 1323-1331, 1988

(1989年2月2日迅速掲載受付)