

腹部外傷を契機に発見された後腹膜出血を伴う 褐色細胞腫の1例

林 拓自, 任 幹夫, 山本 致之, 嘉元 章人
氏家 剛, 西村 健作, 三好 進
大阪労災病院泌尿器科

PHEOCHROMOCYTOMA WITH RETROPERITONEAL HEMORRHAGE AFTER ABDOMINAL TRAUMA

Takuji HAYASHI, Mikio NIN, Yoshiyuki YAMAMOTO, Akihito KAMOTO,
Takeshi UJIKE, Kensaku NISHIMURA and Susumu MIYOSHI
The Department of Urology, Osaka Rosai Hospital

A 35-year-old man was delivered to the emergency room complaining of right flank pain because of blunt abdominal trauma sustained while playing baseball. Enhanced computed tomography (CT) revealed a right adrenal mass and fluid collection around the mass. We diagnosed the mass as pheochromocytoma by endocrinological examination and radioisotopical imaging test. After absorption of the hematoma three months after the injury, laparoscopic right adrenalectomy was performed. He had an uncomplicated postoperative course without supplementation of catecholamine. Pathological findings were compatible with pheochromocytoma. Eight months after the operation, he had no evidence of recurrence.

(Hinyokika Kiyo 55 : 703-706, 2009)

Key words : Pheochromocytoma, Adrenal hemorrhage, Trauma

緒 言

褐色細胞腫は二次性高血圧の代表的な原因疾患であるが、臨床的に高血圧や頻脈などの特徴的な症状を示さない場合もある。画像診断の普及に伴い、副腎腫瘍として発見され無症候性のうちに内分泌学的検査にて診断され、摘除術を施行されることも多くなってきている。今回われわれは腹部外傷を契機に後腹膜出血を伴う副腎腫瘍として発見され、保存的加療後に腹腔鏡下に摘除しえた褐色細胞腫の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：35歳，男性

主訴：CT 異常（右副腎腫瘍）

既往歴：特記すべきことなし

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：2008年4月20日、野球の試合中に他選手との接触にて腹部を打撲し、右側腹部痛が持続するため、他院に救急搬送となった。造影CTにて右副腎腫瘍とその周囲の液体貯留を認め、血腫が疑われた。2日後の内分泌学的検査にて血中カテコラミンが高値であり、褐色細胞腫を疑われ、5月19日に当科紹介受診となった。

造影CT所見：右副腎に径3cmの腫瘍を認め、その周囲に液体貯留を認めた（Fig. 1）。右副腎腫瘍からの出血が疑われた。右副腎腫瘍の一部に嚢胞性病変を認めた。また他の部位に明らかな外傷を認めなかった。

現症：身長166.5cm，体重58.6kg，血圧123/56mmHg，脈拍66/min

一般血液・尿検査所見：特記すべき異常所見なし

心電図所見：Sinus rhythm, HR 70/min, 異常所見なし

経過：後腹膜血腫の改善を期待して、保存的加療の後に手術を施行する方針となった。血液検査ではアドレナリン587pg/ml（基準値100以下）、ノルアドレナリン1,630pg/ml（100～450）、ドーパミン9pg/ml（20以下）と、アドレナリン・ノルアドレナリンの高値を認めた。畜尿検査ではアドレナリン444.6μg/日（3.4～26.9）、ノルアドレナリン900.0μg/日（48.6～168.4）、ドーパミン3,115.8μg/日（365.0～961.5）、メタネフリン1.58mg/日（0.04～0.19）、ノルメタネフリン0.94mg/日（0.09～0.33）、VMA 8.8mg/日（1.5～4.3）、HVA 4.1mg/日（2.1～6.3）と、カテコラミン3分画と代謝産物が高値であった。またMIBGシンチグラフィーにて右副腎腫瘍部に一致した集積を認め（Fig. 2）、右副腎褐色細胞腫と診断した。5月29日のCTでは副腎周囲の液体貯留は消失していた。術



Fig. 1. Enhanced CT revealed a right adrenal mass and fluid collection around the mass.

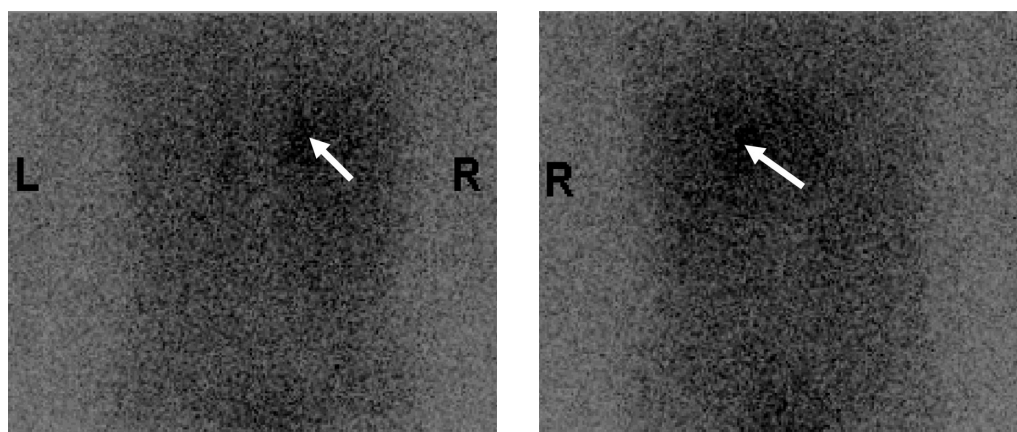


Fig. 2. Accumulation in right adrenal gland was demonstrated on MIBG-scintigraphy.

前から α ブロッカーを内服し、7月2日に腹腔鏡下右副腎摘除術を施行した。術中は収縮期血圧が 300 mmHg 台までの血圧上昇を認め、フェントラミンの投与が必要であった。副腎尾側で下大静脈との間の組織は固く癒痕様であった。手術時間は開創から閉創まで3時間46分、出血量は 150 ml で輸血を必要としなかった。摘出標本は 20 g、腫瘍は $3.3 \times 3.7 \times 2.3$ cm、断面は黄褐色で一部に嚢胞形成を認めた。術後の血

圧・脈拍・血糖値は安定しており、カテコラミンの補充を必要としなかった。術後7日目の血液検査では、アドレナリン 28 pg/ml、ノルアドレナリン 382 pg/ml、ドーパミン 7 pg/ml と正常化していた。病理組織所見は副腎被膜内で増殖する典型的な褐色細胞腫であった (Fig. 3)。細胞異型などの悪性所見を認めなかった。以降は外来で経過観察しているが、2009年3月現在、再発の徴候などは認めていない。

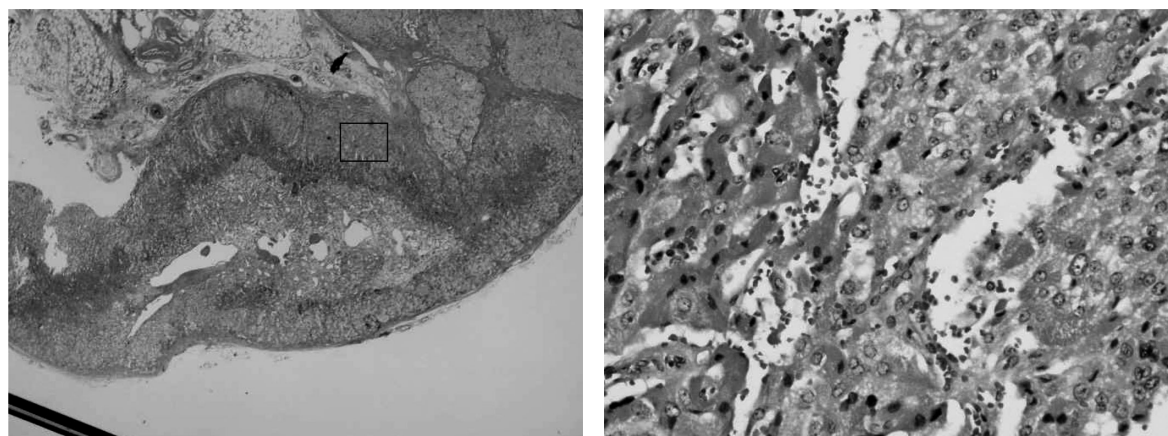


Fig. 3. Pathologic appearance of the resected specimens (HE stain). Pathological findings were compatible with pheochromocytoma.

考 察

本症例では腹部外傷（他選手との接触という鈍的外傷）後に持続する腹痛に対して CT 検査を施行したところ、後腹膜出血と副腎腫瘍の存在が認められた。外傷の前に自然出血していた可能性も否定できないが、血腫が改善した時間的経過なども考慮すると外傷を契機として出血したと考えられる。

成人での副腎出血の原因としては、外傷、腫瘍、出血性素因、敗血症、動静脈血栓、火傷、ストレス、特発性などがある。出血量が多ければ失血症状や血腫による圧迫進展症状、急性副腎不全を来すが、少量出血では臨床的には無症候のものまで様々である。時間的経過とともに内部の石灰化や偽嚢胞を形成することもある¹⁾。ただし、外傷性副腎出血は重症外傷に多いとされており²⁾、本症例のような軽微な受傷機転による発症は、外傷の他に何らかの基礎疾患を疑うべきであると言われている³⁾。また副腎出血による後腹膜血腫で急性腹痛や出血性ショックを来した26例中13例が褐色細胞腫であったとの報告もあり⁴⁾、副腎腫瘍からの出血が疑われた時には褐色細胞腫を念頭に入れておくべきであると思われる。

褐色細胞腫は典型的な臨床症状を呈する場合もあるが、近年は画像診断の普及によって無症状で偶発的に発見される場合が増加している⁵⁾。手術施行例からみると、Cushing 症候群と褐色細胞腫の手術例の30～40%が副腎偶発腫瘍として発見されていたとする報告もある⁶⁾。また時に自然破裂を起こし後腹膜血腫として発見される場合が知られている⁷⁾。本症例のように外傷を契機に副腎出血を伴って発見された例は稀であり、検索しえた範囲では8例の報告があったので自験例を含めてまとめた（Table 1）。妊娠時高血圧があったものと頻脈であったものの2例以外は褐色細胞腫に典型的な症状を認めず、部位はすべて右側であった。解剖学的構造上、副腎は背部に脊柱があるため胸腹部の圧迫損傷を受けやすく、特に肝臓に覆われる右

側の方が胃の背面にある左副腎よりも出血しやすいとの説がある¹⁾。褐色細胞腫の自然破裂例では左右どちらも報告されている⁷⁾ことからこの説は支持される。転帰としては、待機的に摘除術を施行できた症例は予後良好であると思われるが、ショックによる死亡例も報告されている。重症例には肺水腫が認められており、その原因としては外傷によるショックからのARDSやカテコラミン心筋症による心不全などが考えられている⁸⁾。もちろん出血性ショックが死因となることもあると思われるが、カテコラミン心筋症が存在していればカテコラミン補充では効果がなくIABPや血中Caの補充、Ca受容体増強薬などの治療が必要となると考えられている⁹⁾。

外傷性副腎出血で褐色細胞腫が疑われるも、褐色細胞腫を合併していなかった症例の報告もある²⁾。最終診断は偽嚢胞、血腫、内部血腫による反応性過形成であったが、鑑別は困難であった。受傷時に緊急的に処置を要する状態でなければ、保存的加療と並行して精査を施行し、経時的変化を追って治療方針を決定するべきであると思われる。

副腎偶発腫瘍に対する2002年のNIH Conference Statement¹⁰⁾では、褐色細胞腫を含めたホルモン産生性の副腎偶発腫瘍は手術適応であるとされている。非機能性副腎偶発腫瘍では、腫瘍径が6 cm以上であれば手術適応、4 cm以下は経過観察、4～6 cmは画像所見により手術適応となることもある。

副腎出血を来した褐色細胞腫の外科的切除に関して注意すべき点として、文献的には記述がないが本症例のように周囲との癒着がある可能性は念頭に入れておかなければならないと考える。局所再発が多くなるかどうかに関しては、まだ報告症例数が少なく経過観察も短期間であるため、今後長期間の経過観察が必要となる。

結 語

腹部の鈍的外傷を契機に後腹膜血腫を認め、保存的

Table 1. Summary of the patients of pheochromocytoma manifested by traumatic adrenal hemorrhage

年齢	性別	報告年	受傷機転	部位	腫瘍の大きさ	受傷前既往	転 帰
14歳	男	1986	蹴打	右副腎	6 cm	特になし	10時間後に死亡
16歳	男	1999	叩打	右副腎近傍	3 cm	特になし	2週間以上後に摘除術
34歳	女	2000	転落	右副腎	6 cm	妊娠時高血圧	3時間半後に摘除術、3カ月後まで人工呼吸管理
79歳	女	2002	打撲	右副腎	不明	頻脈	2日後に動脈塞栓術、その後にショック、死亡
67歳	男	2005	転倒	右副腎	5 cm	不明	4カ月後に摘除術
79歳	男	2006	転倒	右副腎	4 cm	胃潰瘍・胆石・前立腺肥大症	6カ月後に摘除術
57歳	男	2008	叩打・蹴打	右副腎	4 cm	ヘルニア・アルコール多飲	回腸穿孔に対して緊急手術、1カ月後に摘除術
35歳	男	自験例	打撲	右副腎	3 cm	特になし	2カ月後に腹腔鏡下摘除術

加療後に腹腔鏡下に摘除しえた褐色細胞腫の1例を経験した。外傷性副腎出血を来した褐色細胞腫はショックにより重症化する症例があるものの、可能であれば保存的加療を施行しながら精査を行い、手術を含めた治療方針を決定するべきであると思われた。

文 献

- 1) 脇 昌子：副腎出血。日臨別冊内分泌症候群Ⅰ：566-569, 2006
- 2) Rana AI, Kenney PJ, Lockhart ME, et al.: Adrenal gland hematomas in trauma patients. *Radiology* **230**: 669-675, 2004
- 3) 佐野 太, 藤川直也, 平井耕太郎, ほか：外傷性副腎出血を契機に発見された褐色細胞腫の1例。泌尿紀要 **52**: 15-17, 2006
- 4) 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
- 5) Aso Y and Homma Y: A survey on incidental adrenal tumors in Japan. *J Urol* **147**: 1478-1481, 1992
- 6) Ito T, Imai T, Kikumori T, et al.: Adrenal incidentaloma: review of 197 patients and report of a drug-related false-positive urinary normetanephrine result. *Surg Today* **36**: 961-965, 2006
- 7) Tanaka K, Noguchi S, Shuin T, et al.: Spontaneous rupture of adrenal pheochromocytoma: a case report. *J Urol* **151**: 120-121, 1994
- 8) May EE, Beal AL and Beilman GJ: Traumatic hemorrhage of occult pheochromocytoma: a case report and review of the literature. *Am Surg* **66**: 720-724, 2000
- 9) Lyon AR, Rees PS, Prasad S, et al.: Stress (Takotsubo) cardiomyopathy—a novel pathophysiological hypothesis to explain catecholamine-induced acute myocardial stunning. *Nat Clin Pract Cardiovasc Med* **5**: 22-29, 2008
- 10) Grumbach NM, Biller BM, Braunstein GD, et al.: Management of the clinically inapparent adrenal mass “incidentaloma”. *Ann Intern Med* **138**: 424-429, 2003

(Received on April 1, 2009)
(Accepted on June 21, 2009)