

特 発 性 副 腎 出 血 の 1 例

大阪医科大学泌尿器科学教室 (主任: 勝岡洋治教授)

坂元 武, 東 治人, 岩本 勇作, 瀬川 直樹
右梅 貴信, 能見 勇人, 上田 陽彦, 勝岡 洋治

IDIOPATHIC ADRENAL HEMORRHAGE: A CASE REPORT

Takeshi SAKAMOTO, Haruhito AZUMA, Yusaku IWAMOTO, Naoki SEGAWA,
Takanobu UBAI, Haruto NOUMI, Haruhiko UEDA and Yoji KATSUOKA

From the Department of the Urology, Osaka Medical College

A 77-year-old man with a low grade fever persisting for 30 days consulted a local physician. A computed tomographic scan of the abdomen showed a mixed density mass on the left adrenal gland. He was referred to our hospital for further examination. Hormonal assay demonstrated a slightly high level of noradrenalin in the serum (18 pg/ml) and vanillyl mandelic acid in the urine (6.2 ng/ml). Magnetic resonance imaging revealed a heterogeneous mass lesion 3 cm in diameter with a high signal intensity on both T1 and T2 weighted images. Angiography showed a hypovascular mass in the supra-renal region suggesting an adrenal tumor or malignancy. Left adrenalectomy combined with en bloc nephrectomy was performed because of severe adhesion. Histologic evaluation showed hematoma without malignant cells due to idiopathic adrenal hemorrhage.

(Acta Urol. Jpn. 44: 805-807, 1998)

Key words: Adrenal hemorrhage, Idiopathic

緒 言

急性副腎出血は種々の原因で発症し、またその症状は出血部位や出血量、副腎皮質機能の脱落程度、基礎疾患の有無によりまったく無症状のものから突然ショック状態で発症し死に至るものまでさまざまである。今回われわれは、熱発を主訴とした特発性副腎出血の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: 77歳, 男性

主訴: 発熱

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1996年8月初旬頃より発熱, 咳嗽を認めるようになり近医受診, 抗生剤等内服したが症状は改善しなかった。精査目的で施行された腹部CTにて左副腎に腫瘤を指摘され当科受診となった。

入院時現症: 体格は中等で栄養状態は良好, 全身状態も良好であり軽度の全身倦怠感を認めるのみであった。腹部所見も特に異常を認めなかった。

入院時検査所見: 血液, 生化学検査では軽度の貧血と炎症所見を認めるのみで電解質などには異常を認めなかった (WBC 7,430/ μ l, RBC 415万/ μ l, Hb 12.2 g/dl, Hct 37.6%, CRP 4.08 ng/ml)。

内分泌学的検査: 血中ノルアドレナリン (718 pg/ml), コルチゾール (23.3 μ g/dl), 尿中 VMA (6.2 ng/ml) の軽度高値を示したが他に異常を認めなかった。

画像診断: 腹部単純CTにて左副腎に一致する領域に内部不均一な径3 cm大の腫瘤陰影を認め腎上極, 脾門部との境界は不明瞭であった (Fig. 1)。腹部MRIでは同部にT1強調画像にて高信号, T2強調画像にて高信号を呈する直径約3 cmの辺縁不正な腫瘤像を認め, 左腎上極, 脾門部との境界はCTと同様に不明瞭であった。またGd-DTPAによる造影

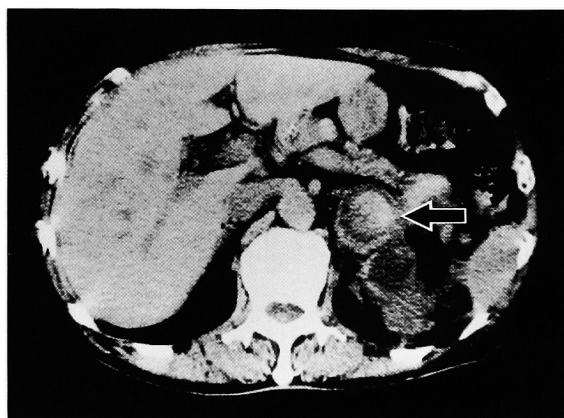


Fig 1. CT showed a mixed density mass on the left adrenal gland (arrow).

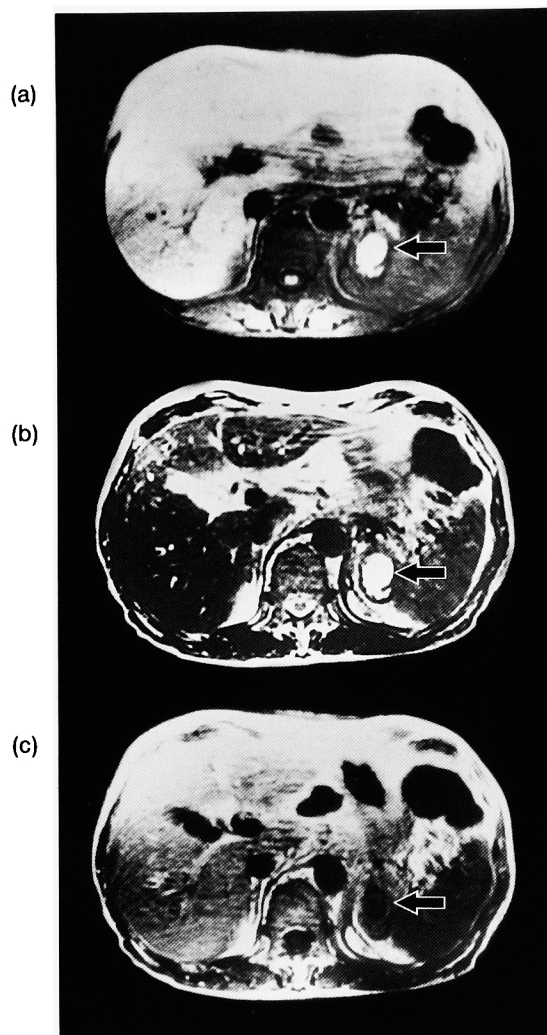


Fig 2. (a) T1-weighted MRI showed high signal intensity in the medial area of the mass and low signal intensity in the peripheral area of the mass. (b) T2-weighted MRI showed a high signal intensity in the medial area of the mass and low signal intensity in the peripheral area of the mass. (c) Gd-DTPA enhanced T1-weighted MRI showed enhancement of the periphery of the mass (arrow).

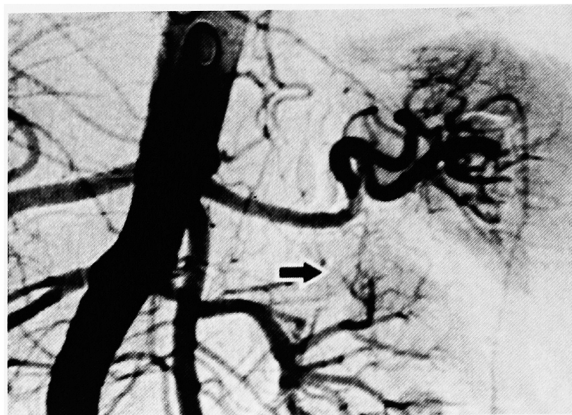


Fig 3. Angiography showed moderate hypervascularity of the tumor (arrow).

T1 強調画像で軽度の造影効果が認められた (Fig. 2). 左副腎動脈造影では腫瘍は主に左副腎動脈により栄養され中等度の血管増生像が認められた (Fig. 3). ^{131}I -MIBG, Ga, Tc によるシンチグラフィーを施行したがいずれも異常集積像は認められなかった. 以上の所見より内分泌活性型左副腎腫瘍の診断 (副腎癌の疑い) にて1996年12月19日, 左副腎摘除術を施行した.

手術所見: 腹部横切開にて経腹部に左副腎に到達した. 腫瘍は弾性硬で周囲臓器との癒着が認められたが, 脾門部との癒着は軽度で鈍的に剝離しえたため, 腫瘍の浸潤はないと判断し脾臓は温存した. 左腎との癒着は強度であり剝離を試みたが出血がひどく, また, 副腎癌の腎浸潤も否定しきれなかったため左副腎とともに一塊として摘除した. 手術時間は2時間55分, 出血量は1,500 mlであった.

摘除標本: 総重量 180 g, 大きさ $4 \times 2 \times 2$ cm, 断面は血腫および一部嚢胞状態変化を伴う黄色調の副腎組織で明らかな腫瘍性病変は見られなかった (Fig. 4a).

病理組織学的所見: 副腎組織は新鮮な出血巣と陳旧化した出血巣が混在しておりこれらの所見は周囲の脂

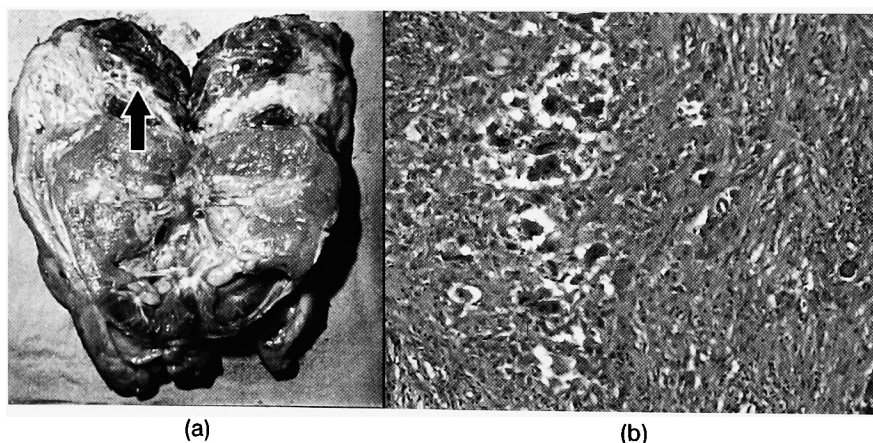


Fig 4. (a) Macroscopic specimen. (b) Histopathology of specimen showing both hematoma and normal adrenal tissue.

肪組織にまで及んでいた。明らかな腫瘍性的変化は認めず、また出血の原因となるような所見は特定できなかった (Fig. 4b)。

考 察

副腎出血は諸家¹⁾の報告によれば、剖検例にて約1%を認めるとされているが実際臨床の場で遭遇する機会はきわめて少なくわれわれが調べたかぎりでは29例が報告されているにすぎない。この理由として、本疾患は激しいショック症状を呈することもあるが慢性に経過することも少なくなく、このような場合には特に症状を示さないことなどがあげられる。これらの出血の原因は褐色細胞腫によるものが最も多く13例が報告されている²⁾が、今回のように原因となる基礎疾患のない特発性副腎出血の報告はきわめて稀でわれわれが検索しえたかぎりでは、本邦報告例は現在まで自験例を含めて3例を認めるのみである。

特発性副腎出血の原因としてはさまざまな要因があるが解剖学的な因子が強く関わっていると言われている³⁾。副腎は非常に血流の豊富な臓器であり多数の動脈が流入している一方、静脈血の流出路には制限があり血管壁も脆弱である。何らかの原因によって大静脈圧が上昇すると副腎内圧が上昇しそれにより出血を生じ、特に右側では副腎静脈も短く大静脈圧の上昇に影響されやすいため副腎出血は右側に多いとされている。そのほか副腎血流量を増加させることに関連してストレスによるACTHの増加やACTH産生腫瘍の存在も一因となりえると考えられている。副腎出血の診断はUS、CT、MRIなどにより比較的容易であるとされている。特にMRIにおいてはT1強調像において高信号を(特に辺縁部)、T2強調像において不均一な低信号を呈し、さらに造影効果を受けないことが特徴的とされている⁴⁾。

われわれの症例ではMRIにおいてT1強調像にて高信号を、T2強調像においても不均一な高信号を呈しGd-DTPAによる造影効果をわずかながら認めていたこと、また血管造影では腫瘍領域に一致して中等度の腫瘍血管増殖像を認めたことなどから副腎腫瘍との鑑別が困難であった。術中所見では明らかな腫瘍血管を認めず、これらの所見が得られた理由は判然としないが、過去にも同様の症例が報告されており^{5,6)}今後これらのことを念頭に入れて診断にあたることが重要であると思われる。

副腎出血の治療は輸液、輸血などの保存的治療にも

かかわらず全身状態が不安定な症例では外科的処置を考慮しなければならないが、全身状態が比較的安定しており腫瘍の存在が明らかでない場合にはCT、MRI等で経過観察すればよいとされている⁷⁾。われわれの症例では術前診断にて副腎腫瘍との鑑別(また良性あるいは悪性副腎腫瘍との鑑別)が困難であったが、術前に確定診断がつかない場合は積極的に経皮的生検などを施行することも考慮すべきであると思われる⁸⁾。

結 語

特発性副腎出血の1例を報告した。副腎出血は稀な疾患で画像診断上画一した所見に乏しく、本症例のように術前診断が困難で腫瘍の存在を否定し得ない場合には針生検などの手段も考慮すべきであると思われる。

本論文の要旨は第159回日本泌尿器科学会関西地方会で報告した。

文 献

- 1) Xarl VP, Steele AA, Davis PJ, et al.: Adrenal hemorrhage in the adult. *Medicine* **57**: 211-221, 1978
- 2) 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
- 3) 鈴木範宣, 高木良雄, 柳瀬雅裕, ほか: 急性腹症を呈した特発性副腎出血. *臨泌* **50**: 309-311, 1996
- 4) Hoeffel C, Legmann P, Leton JP, et al.: Spontaneous unilateral adrenal hemorrhage: computerized tomography and magnetic resonance imaging findings in 8 cases. *J Urol* **154**: 1647-1651, 1995
- 5) Lawson DW, Corry RJ, Patton AS, et al.: Massive retroperitoneal adrenal hemorrhage. *Surg Gynecol Obstet* **129**: 989-994, 1969
- 6) Swift DL, Lingeman JE, Baum WC, et al.: Spontaneous retroperitoneal hemorrhage: a diagnostic challenge. *J Urol* **123**: 577-582, 1980
- 7) Podes D and Cane M: Spontaneous retroperitoneal hemorrhage. *J Urol* **147**: 311-318, 1992
- 8) Shah HR, Love L, Williamson MR, et al.: Hemorrhagic adrenal metastasis: CT findings. *J Comput Assist Tomogr* **13**: 77-81, 1989

(Received on April 16, 1998)

(Accepted on July 27, 1998)