

脊髄損傷患者に合併した巨大副腎骨髓脂肪腫の1例

西尾浩二郎, 常盤 紫野, 齊藤 恵介, 吉井 隆
 芦沢 好夫, 栗原 浩司, 上山 裕, 三方 律治
 安田 弥子, 井手 久満, 武藤 智, 岡田 弘*
 堀江 重郎

帝京大学医学部泌尿器科学教室

A CASE OF A GIANT ADRENAL MYEOLIPOMA IN A MAN WITH SPINAL CORD INJURY

Kojiro NISHIO, Shino TOKIWA, Keisuke SAITO, Takashi YOSHII,
 Yoshio ASHIZAWA, Koji KURIHARA, Yutaka KAMIYAMA, Noriharu MIKATA,
 Michiko YASUDA, Hisamitsu IDE, Satoru MUTO, Hiroshi OKADA
 and Shigeo HORIE

The Department of Urology, Teikyo University School of Medicine

A 38-year-old man in a wheelchair for spinal cord injury from a traffic accident was referred to our hospital with complaint of dull right flank pain. The patient had a history of skin ulcer formation on both toes due to poor circulation. Abdominal ultrasonography and computed tomographic scan revealed a huge retroperitoneal tumor compressing the right kidney. Serum levels of cortisol, adrenocorticotrophic hormone, aldosterone, adrenalin, noradrenalin, urinary levels of vanillylmandelic acid, homovanillic acid, 17-ketosteroid and 17-hydroxycorticosteroid were all within normal limits. Combining all preoperative diagnostic information, the possibility of retroperitoneal liposarcoma could not be thoroughly ruled out. The patient consented to undergo resection of the tumor with the right kidney. Prior to the scheduled operation simulation of the positioning on the operation table was done to evaluate the compressing pressure. During operation decompressing pads were used to minimize the compressing pressure and intermittent pneumatic compression was also used to prevent pressure ulcer and facilitate circulation to the lower extremities. Five thousands units of heparin (FragminR, Pfizer, USA) was used daily to prevent deep vein thrombosis until the patient could use his wheelchair. Perioperative rehabilitation was conducted by a team of physical therapists. The excised tumor weighed 1,320 g. Pathologic diagnosis was an adrenal myelolipoma. Convalescence was uneventful and the patient was discharged on the 10th post operative day. Between 1992 and 2006, 80 cases of adrenal myelolipoma were reported in Japan. Our case was found to be the second largest one. We reviewed these 80 cases and discussed the diagnosis and treatment strategy of the adrenal myelolipoma. We also discussed the perioperative management for patients with spinal cord injury.

(Hinyokika Kyo 53 : 387-391, 2007)

Key words : Adrenal myelolipoma, Spinal cord injury, CT

緒 言 症 例

副腎骨髓脂肪腫は、比較的稀な副腎良性腫瘍であるが、近年の CT, MRI を中心とした画像診断の進歩とともに、健康診断や高血圧などの他疾患の精査中に偶然発見される例が増加している。今回われわれは、脊髄損傷患者に合併した巨大な副腎骨髓脂肪腫を経験したので文献的考察を加えて報告する。

患者：38歳，男性
 主訴：右側腹部痛
 既往歴：13歳時に交通事故により脊髄損傷（L4/5脊損），右深部静脈血栓
 家族歴：特記すべき事なし
 現病歴：13歳時から背髄損傷による両下肢麻痺のため車椅子生活となっていた。排尿は清潔間歇自己導尿で管理していた。2006年1月2日発熱および右側腹部痛を認め、近医より当院紹介受診した。持参した腹部CT上、右後腹膜腔に右腎を圧排する巨大腫瘍（17×

* 現：獨協医科大学越谷病院

16×12 cm) を認め、精査加療目的で入院となった。

入院時現症：身長：165 cm，体重：77 kg，体温：36.4°C，血圧：114/68 mmHg，脈拍：78回/分（整）
胸部：所見なし，腹部：右季肋部に表面平滑，可動性があるが圧痛のない腫瘍を触知，四肢神経学的所見：下肢の対麻痺を認めた。

入院時検査所見：末梢血液一般ならびに生化学検査は正常。内分泌検査では，血中コルチゾール，ACTH，アルドステロン，アドレナリン，ノルアドレナリン，尿中VMA，HMA，17KS，17OHCSは正常範囲内であった。

呼吸機能は正常範囲内であったが，脊髓損傷患者では術後肺合併症のリスクが高まるため，術前から理学療法士による呼吸リハビリテーションを行い，術後の有効な呼吸法について習得させた。

画像診断：腹部CT：腎上極に接する境界明瞭な脂肪組織を主体とした腫瘍性病変が認められた（Fig. 1）。副腎髓質シンチでは，異常集積像を認めなかった。MRIは脊椎を金属プレートとボルトで固定しているため施行できなかった。

以上の所見より右副腎脂肪腫を疑うも脂肪肉腫も否



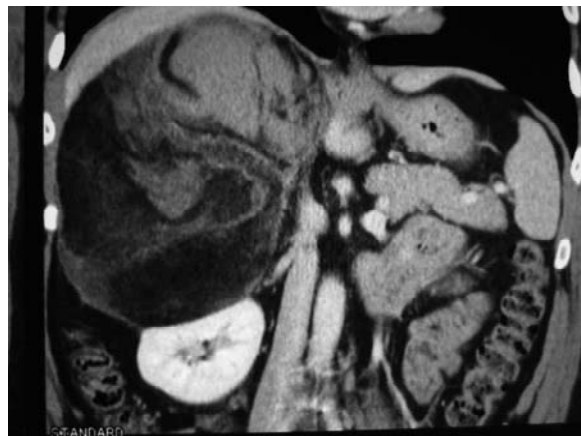
Fig. 2. 摘出腫瘍肉眼的所見. 右腎と接する巨大な腫瘍 (1,320 g) を認めた。

定できないため，2006年3月14日経腹的アプローチで右副腎・腎合併切除を行った。

病理所見：Gerota 筋膜内で右腎と接する巨大な腫瘍（重量 1,320 g）を認めた。腫瘍の一部に正常右副腎組織を認めた。腫瘍と右腎は結合組織のみでつながっており，両者の連続性はなかった（Fig. 2）。組織

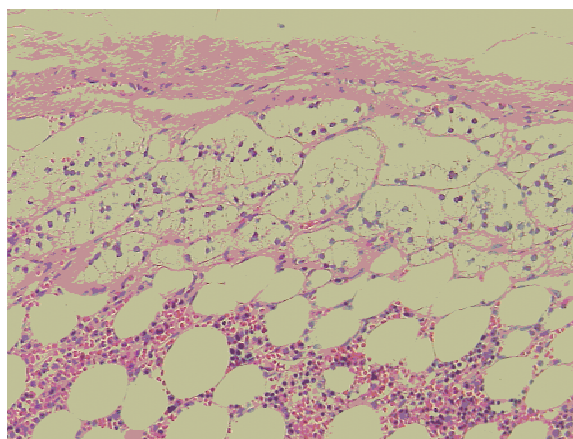


(a)

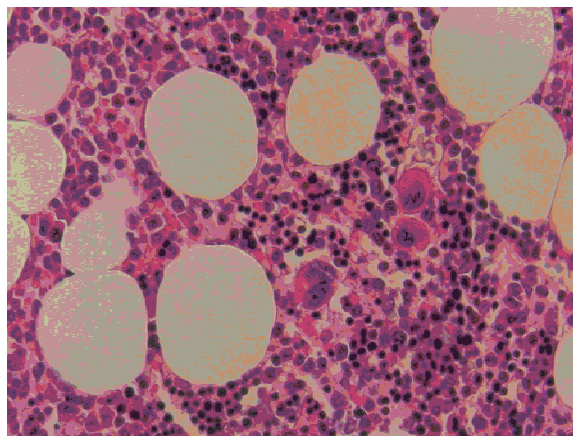


(b)

Fig. 1. 腹部CT. 水平断 (a)，冠状断 (b). 右腎上極に接する，脂肪組織を主体とした腫瘍性病変を認めた。



(a)



(b)

Fig. 3. 摘出腫瘍の病理組織所見. H. E 染色×50 (a)，H. E 染色×100 (b). 大部分が成熟した脂肪細胞から成り，脂肪組織に混ざって骨髓造血細胞を認めた。

学的所見: 大部分が成熟した脂肪細胞から成り, 脂肪組織に混ざって骨髓造血細胞 (顆粒球系, 赤芽球系, 巨核球) を認めた. 腫瘍上極には出血像を認め, 周囲には形質細胞を主体とした炎症性細胞浸潤を伴っていた. 副腎被膜から腫瘍の被膜へと連続性に移行が見られ, 腫瘍被膜直下に副腎皮質淡明細胞が散見された (Fig. 3).

周術期の経過: 脊髄損傷患者に対する周術期の管理として, 術前に患者を手術台に載せ, 荷重のかかる部位を特定し, 除圧マットの装着をシミュレートした. 手術当日出棟前に弾性ストッキング (elastic stocking: ES) を着用し, 麻酔導入後に間歇空気圧迫装置 (intermittent pneumatic compressor: IPC: フロートロン, ハントレー社製, USA) を装着した. ICP の設定は加圧 (40 mmHg) 12秒・減圧48秒とした. また, 周術期は血栓症予防のためフラグミン5,000単位/日を使用し, 自力で車椅子による移動可能となるまで継続投与した. 手術翌日から床上で理学療法士によりリハ

ビリを開始した. ICP は超音波ドップラー検査で, 深部静脈血栓のない事を確認し術後第2日目に中止した. ES はフラグミンを中止するまで着用とした.

術後経過は良好で, 術後第10病日退院となった.

考 察

副腎骨髓脂肪腫は比較的稀な良性腫瘍と報告されているが, 最近の画像診断の進歩により本邦でも報告が散見される. 福井ら¹⁾は1992年から2002年までの10年間の本邦における64例の集計を行っている. 福井らの報告以降2006年5月までの本邦での報告例14例をまとめ, Table 1 に示した.

福井らの報告と今回集計した14例を合わせた78例について検討を加えた. 年齢の中央値は53歳, 男女比は41例: 37例であった. 診断時に症状を認めたもの35例, 認めなかったもの43例, 患側は右44例, 左30例, 両側性腫瘍4例であった. 摘出腫瘍重量の中央値は128 g であった. われわれの症例は, 1,320 g と2003

Table 1. 本邦における副腎骨髓脂肪腫症例論文報告 (過去14症例一覧)

発行年	発行雑誌	報告者	年齢	性別	初発症状	患側	治療	病理	サイズ (cm)	重量 (g)
2003. 11	泌尿器科紀要	福井ら* ¹	39	女性	嘔吐, 心窩部痛	右	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	11×8×5	240
2003. 2	泌尿器外科	志賀ら* ⁵	52	男性	側腹部痛, 血尿	右	開放性腎副腎腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	2×2×2	記載なし
2003. 3	倉敷中央病院年報	和人ら* ⁶	68	男性	偶発	左	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	11×6×5	350
2003. 9	Radiation Medicine	Nakajo ら* ⁷	37	女性	側腹部痛	右	TAE 後開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	8×6×6	178.5
2003. 9	南大阪病院医学雑誌	中島ら* ⁸	61	男性	右季肋部痛, 発熱	左	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	9×6	記載なし
2003. 9	南大阪病院医学雑誌	中島ら	52	男性	腹部腫瘍	右	経過観察	骨髓脂肪腫	6×6×6	記載なし
2004. 3	Surgery Today	Akamatsu ら* ⁹	51	男性	腹部痛	右	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	31×24.5×11.5	6,000
2004. 6	泌尿器外科	笠原ら* ¹⁰	35	男性	側腹部痛	左	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	記載なし	658
2004. 6	泌尿器外科	笠原ら	49	男性	側腹部痛	右	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	記載なし	420
2004. 6	International Journal of Urology	Hisamatsu ら* ¹¹	67	女性	偶発	左	腹腔鏡下腫瘍摘出術	副腎腺腫をともなった骨髓脂肪腫	3.5×3.0×2.0	記載なし
2004. 9	ホルモンと臨床	林ら* ¹²	52	男性	腹部痛	左	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	10×9.5×6.2, 16.5×12×7	260, 1,000
2005. 1	日本臨床外科学会雑誌	高橋ら* ¹³	48	男性	悪寒, 発熱, 水溶性下痢	右	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	20×18×14	2,400
2005. 9	西日本泌尿器科	坪井ら* ¹⁴	46	女性	腹部鈍痛	右	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	6.5×6.0×6.0	45
2005. 9	西日本泌尿器科	坪井ら	56	女性	易疲労感	右	開放性腫瘍摘出術	骨髓脂肪腫	4.5×3.5×3.0	20

Table 2. 過去10年の副腎骨髓脂肪腫報告症例と過去14例の報告

症例	年齢	性別	初発症状	患側	重量 (g)
64	53 (26-83)	男: 32, 女: 32	症状あり: 23, 症状なし: 41	右: 35, 左: 25, 両側: 4	86.5 (3-3,500)
14	49 (20-70)	男: 9, 女: 5	あり: 12, なし: 2	右: 9, 左: 5	350 (20-6,000)
自験例	38	男	あり	右	1,320

年以降では3番目の大きさであった。福井らの報告¹⁾によれば、有症状例では腫瘍重量の中央値は328gと無症状例の54gに比較して大きい傾向が見られた。本症例の場合は、脊髓損傷による対麻痺により知覚麻痺を生じていたため腫瘍が巨大化しても自覚症状が乏しかったものと考えられた。福井らの報告した64例とこれ以降の最近の14例を比較した (Table 2)。

ほとんどの骨髄脂肪腫は、症状を伴わないとする報告²⁾があるが、福井らの報告では33%が、最近の14例の報告では85%が症状を有しており、有症状例が増加していた。随伴症状としては、背部痛・腹部痛・側腹部痛・出血などの腫瘍に起因する症状が大半を占めた。福井らの報告例の腫瘍重量の中央値は86.5gであり、最近の14例の報告では350gと腫瘍重量が増加する傾向が見られた。骨髄脂肪腫に随伴する疾患として腎癌、褐色細胞腫、Cushing 症候群、甲状腺機能亢進症などの合併例が報告されている³⁾が、今回集計した14例の中にも2例の副腎内分泌活性腫瘍との合併症例を認めた。

診断にはMRIが最も有用であるが、本症例では、脊椎の固定にステนレスプレートが用いられていたためMRIは施行できなかった。鑑別診断としては、内分泌非活性の副腎腫瘍である骨髄脂肪腫・脂肪腫・脂肪肉腫が挙げられるが、巨大な副腎腫瘍の場合、術前鑑別診断は困難である。

副腎骨髄脂肪腫の治療は、無症状で腫瘍径4cm以下ものや、高リスク患者に発生した場合は6カ月ごとのCTなどで経過観察とし、腫瘍径の増大や症状が出現した場合に外科的切除が選択される。また、内分泌活性のある場合も外科的切除の適応とされている。過去の報告では腫瘍径4~10cmの副腎骨髄脂肪腫の治療は、経過観察と外科的切除が相半ばしていた。10cm以上の場合は悪性腫瘍を完全に否定できない事と、有症例が多いことから外科的切除が第一選択として行われている。本症例では、症状のある10cmを越える巨大な腫瘍であり、悪性腫瘍を完全に否定できない事に加えて患者の強い希望により腎・副腎の合併切除を選択した。

今後、超音波検査・CT・MRIなどの画像診断の精度が向上し、副腎骨髄脂肪腫が強く示唆される症例が増加してゆくと考えられる。経皮的針生検を薦める報告もあり、保存的治療を含めた治療方針を提示する必要があると考えられた。

また、本患者のような脊髓損傷患者の周術期管理では、以下の点に留意する必要がある。

①肺合併症の予防

術前から、理学療法士による呼吸リハビリを行い、抜管後に有効な呼吸ができる訓練を行った。

②褥創の予防

褥創が発生してからの治療は困難であるため、その予防が肝心である¹⁴⁾ため、術前に患者を手術台に載せて、手術時の体位をとり体に圧のかかる部位を特定し、手術時には序圧パッドで減圧を図った。

③深部静脈血栓 (deep vein thrombosis: DVT) と肺血栓塞栓症 (pulmonary thromboembolism: PE) の予防

本邦でも最近DVT, PEの患者が増加しているが、本症例のように下肢の対麻痺のある患者ではよりリスクが高くなる。本症例の場合は、肺血栓塞栓症/深部静脈血栓症 (静脈血栓塞栓症) 予防ガイドライン¹⁵⁾に沿って、フラグミンの使用・弾性ストッキングの着用とICPの装着を行った^{16,17)}。さらに、術後DVTの有無を超音波カラードップラーで確認した。

脊髓損傷患者の生命予後の改善に伴って、外科手術の対象となる脊髓損傷患者が増加してくると考えられる。これらの患者に対しては、一般の患者よりもさらに厳重な周術期管理が求められると考えられた。

結 語

38歳、脊髓損傷男性に発生した巨大副腎骨髄脂肪腫の1例を報告するとともに、1992年以降の本邦報告例についてまとめた。

本論文の主旨は、第582回日本泌尿器科学会東京地方会において発表した。

文 献

- 1) 福井直隆, 林 哲夫, 川野圭三, ほか: 消化器症状を契機に発見された副腎骨髄脂肪腫の1例. 泌尿紀要 **49**: 667-670, 2003
- 2) Zografos GN, Korkolis D, Georgoutsos P, et al.: Giant myelolipoma of the right adrenal gland. Int J Clin Pract **56**: 319-320, 2002
- 3) Selye H and Stone H: Hormonally induced transportation of adrenal into myeloid tissue. Am J Pathol **26**: 211, 1950
- 4) 志賀淑之, 鈴木康一郎, 堤 雅一, ほか: 尿管結石を契機に偶然発見された対側腎盂腫瘍に合併した副腎骨髄脂肪腫の1例. 泌尿器外科 **16**: 183-186, 2003
- 5) 和仁洋治, 飛田 陽, 津嘉山朝達: 副腎巨大骨髄脂肪腫の1例. 倉敷中病年報 **65**: 147-149, 2003
- 6) Nakajo M, Onohara, S, Shinmura K, et al.: Embolization for spontaneous retroperitoneal hemorrhage from adrenal myelolipoma. Radiol Med **21**: 214-219, 2003
- 7) 中島秀行, 江村俊也, 加藤 茂, ほか: 画像診断が有用であった副腎骨髄脂肪腫の2症例. 南大阪病医誌 **51**: 25-29, 2003

- 8) Akamatsu H, Koseki M, Nakaba H, et al.: Giant adrenal myelolipoma. *Surg Today* **34**: 283-285, 2004
- 9) 笠原敏男, 大森 圭, 斉藤克幸, ほか: 自然破裂を来した副腎骨髓脂肪腫の2例. *泌尿器外科* **17**: 709-712, 2004
- 10) Hisamatsu H, Sasaki H, Tsuda S, et al.: Combined adrenal adenoma and myelolipoma in a patient with Cushing's syndrome. *Int J Urol* **11**: 416-418, 2004
- 11) 林 周平, 高野幸路, 高野順子, ほか: 無治療で経過した先天性副腎過形成(21-水酸化酵素欠損症)に巨大骨髓脂肪腫を合併した1例. *ホルモンと臨 増刊号*: 162-170, 2004
- 12) 高橋 裕, 山口哲哉, 武田亮二, ほか: 巨大副腎骨髓脂肪腫の1例. *日臨外会誌* **66**: 197-201, 2005
- 13) 坪井 啓, 渡辺昌美, 藤田 治, ほか: 腹腔鏡下摘除術を施行した副腎骨髓脂肪腫の2例. *西日泌尿* **67**: 562-567, 2005
- 14) 小林美奈子, 毛利靖彦, 登内 仁, ほか: 特殊な患者の周術期管理. 褥創患者. *消化器外科* **28**: 1003-1009, 2005
- 15) 肺血栓塞栓症/深部静脈血栓症(静脈血栓塞栓症)予防ガイドライン. *日血栓止血会誌* **15**: 153-168, 2004
- 16) 岸 義彦, 楊 青眞, 蛭名洋子, ほか: 周術期肺血栓塞栓症予防対策—第2報: 1万症例を経験して—, *麻酔* **55**: 431-435, 2006
- 17) 鈴木一也, 浅野寿利, 春藤恭昌, ほか: 急性肺血栓塞栓症の予防対策と治療. *消化器外科* **28**: 977-989, 2005

(Received on October 20, 2006)
(Accepted on January 10, 2007)