

副腎骨髓脂肪腫の2例

癌研究会付属病院泌尿器科 (部長: 河合恒雄)

壽美 周平, 國保 昌紀, 石橋 克夫

山内 民男, 鷲塚 誠, 河合 恒雄

ADRENAL MYEOLIPOMA: TWO CASE REPORTS

Shuhei SUMI, Masanori KOKUHO, Yoshio ISHIBASHI,

Tamio YAMAUCHI, Makoto WASHIZUKA and Tsuneo KAWAI

From the Department of Urology, Cancer Institute Hospital

(Chief: Dr. T. Kawai)

We report 2 cases of adrenal myelolipoma which were suspected preoperatively and confirmed by surgical resection. As with most cases previously reported, the lesions were found in obese, middle-aged persons. Laboratory tests of adrenal function revealed values within the normal level. Excretory urography showed radiolucent masses in the suprarenal area displacing the kidney inferiorly. Computerized tomography revealed well-defined masses consisting of fat density areas and higher density areas. Ultrasonography demonstrated hyperechoic, heterogeneous tumors. The tumors were shown to be hypovascular and adrenal in origin on the angiogram. An operation was performed because of complaint of flank pain in the first case and hypertension associated with elevated plasma renin activity in the second case. The pathological study disclosed typical adrenal myelolipoma with a mixture of hematopoietic and adipose tissue.

Adrenal myelolipoma is clinically unusual and only 41 cases with premortem diagnosis have been reported in English literature. We herein report the 14th and 15th cases in Japan. As computerized tomography and ultrasonography become more widely used, we believe that the number of cases difficult to differentiate from a malignancy will increase.

Key words: Adrenal myelolipoma, Suprarenal mass

緒 言

副腎骨髓脂肪腫は、非機能性良性腫瘍で、組織学的には造血組織と脂肪組織より構成される。通常無症状に経過するため、かつては剖検時に偶然発見される場合が多かった。近年になり、CT、超音波の普及により、生前の発見率が高まり外科的切除例の報告も多くみられるようになったが、術前の鑑別診断は必ずしも容易ではない。最近著者は、CT、超音波、血管造影所見の総合により、術前診断が可能であった2例を経験したので、文献的考察とともにここに報告する。

症 例

症例1: 47歳, 女性

初診: 1985年4月10日

主訴: 右側腹部痛

家族歴: 特記すべきことなし

既往歴: 40歳時, 子宮筋腫にて単純子宮全摘施行。

47歳時, 交通事故にて肩関節脱臼。

現病歴: 1985年3月, 交通事故にて他院に入院中, 右側腹部鈍痛を自覚したため, 4月10日, 当院内科を受診。CTにて右腎上部腫瘍を指摘され, 5月1日, 精査目的にて当科入院となった。

入院時現症: 身長 144 cm, 体重 52 kg (肥満度 + 31%), 血圧 140/90 mmHg, 腹部は平坦, 軟で腫瘍および肝・腎・脾を触知せず。その他の身体所見に異常を認めず。

一般検査所見 血算・血液生化学・血沈・CRP・検尿に異常を認めず。

内分泌学的検査: 血中コルチゾール 4.6 $\mu\text{g/dl}$, 血中アルドステロン 57 pg/ml, 尿中カテコールアミン 72.7 $\mu\text{g/dl}$, 尿中 17-KS 2.6 mg/day, 尿中 17-OHCS 4.8 mg/day といずれも正常範囲内であった。

X線学的検査: IVP では右腎の上方よりの圧排像を認めた (Fig. 1)。CT では右の腎上部に, 長径約 7 cm の境界明瞭な, 脂肪および水の吸収度を示す腫瘍

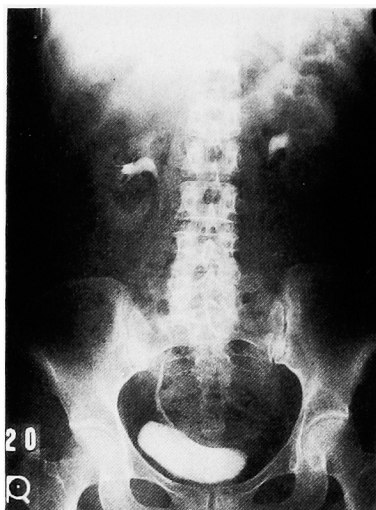


Fig. 1. Excretory urography shows radiolucent mass in the right suprarenal area displacing the kidney inferiorly

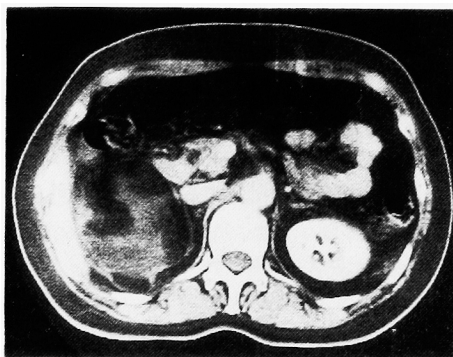


Fig. 2. CT demonstrates well-defined heterogeneous mass consisting of fat density areas and higher density areas

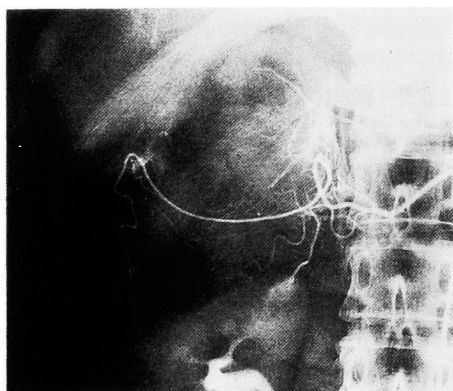


Fig. 3. Angiogram reveals that the tumor is adrenal in origin and hypovascular

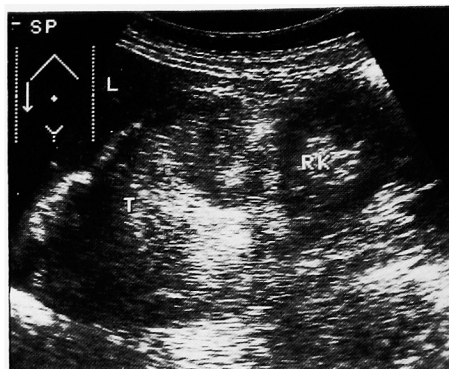


Fig. 4. Ultrasonogram shows hyperechoic, heterogeneous mass between liver (L) and right kidney (RK).

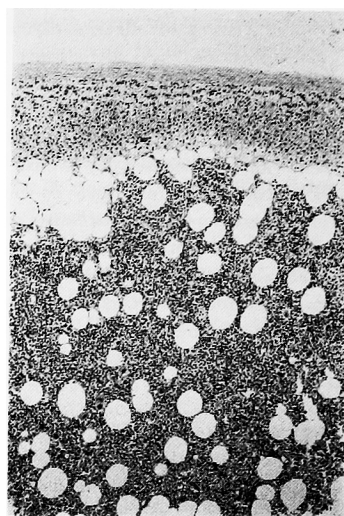


Fig. 5. Photomicrograph demonstrates typical myelolipoma consisting of adipose and hematopoietic tissue. Residual adrenal cortex is also seen.

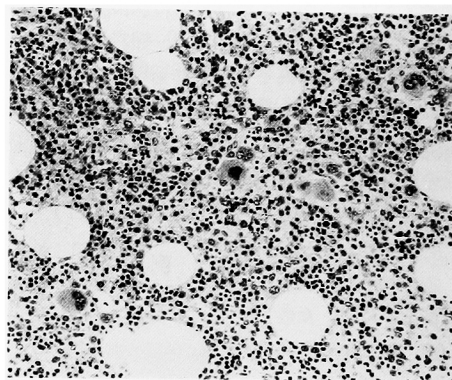


Fig. 6. high-power micrograph demonstrates various bone marrow elements including megakaryocytes.

が確認された。腫瘍内に石灰化はなく、また造影剤による増強効果を認めなかった (Fig. 2)。右中副腎動脈造影では、同血管は圧排伸展され、ごく軽度の vascularity を有する腫瘍が描出された (Fig. 3)。

超音波検査: 肝右葉下面と右腎上極の間に、一部に hypoechoic な部分を混在する hyperechoic mass が示された (Fig. 4)。

以上の検査所見より副腎骨髓脂肪腫が最も強く疑われたが、患者が側腹部痛を訴えていたため、5月17日手術を施行した。

手術所見: 右季肋下横切開にて経腹膜的に腫瘍に達すると、右副腎部に線維性被膜に被われた境界明瞭な腫瘍が認められた。腫瘍と肝および腎の間には中等度の癒着がみられたが、これを剥離し腫瘍を切除した。

摘出標本の大きさは $12 \times 7 \times 4$ cm、重量は 225 g であった。剖面には黄色の脂肪腫様の部に加えて、暗赤色の部および壊死組織様の部を認めた。

病理組織学的所見: 分化成熟した脂肪組織と造血組織とが前者優位に混在しており、線維性被膜直下の一部には副腎皮質組織の残存もみられた (Fig. 5, 6)。以上より副腎に発生した骨髓脂肪腫と診断した。

術後、側腹部痛は消失し、経過順調で第20病日に退院した。

症例 2: 59歳、男性

初診: 1986年1月14日

主訴: 肝下部腫瘍の精査希望

家族歴: 父が心筋梗塞にて67歳時死亡。母が67歳時、弟が50歳時に胃癌にて死亡。

既往歴: 40歳より糖尿病を指摘され経口糖尿病薬使用中。また41歳より高血圧に対し降圧剤を服用している。

現病歴: 1985年12月、他院での人間ドックにて超音波検査施行され肝下部の腫瘍を指摘された。1986年1月14日、当院内科入院。諸検査にて右副腎腫瘍を疑われ、同月30日、当科へ転科となった。

入院時現症: 身長 163 cm、体重 65 kg (肥満度 + 15%)、血圧 128/76、(メチルドーパ 750 mg、トリパミド 30 mg など服用中)。腹部に腫瘍を触知せず。その他一般身体所見に異常を認めず。

一般検査所見・血算は正常。血液生化学; γ -GTP 61 mU/ml (7~41)、血糖値 220 mg/dl (66~109) の2項目以外は正常範囲であった。検尿; 糖 (+)、蛋白 (-)、RBC 0~1/hpf

内分泌学的検査: 血中コルチゾール 10.8 μ g/dl、血中アルドステロン 110 pg/ml、血中レニン活性 11 ng/ml/hr、尿中カテコールアミン 62.3 μ g/day、尿中 17-



Fig. 7. CT reveals well-defined mass consisting of fat density areas and water density areas.

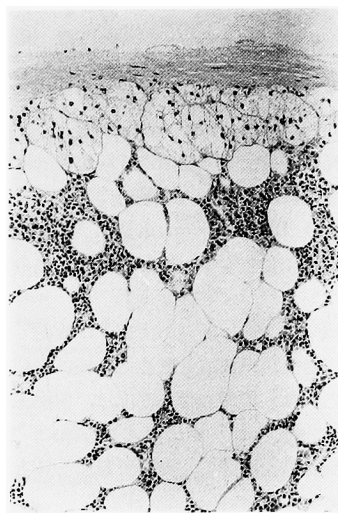


Fig. 8. Pathological study reveals myelolipoma of the adrenal which consists of mature adipose tissue and hematopoietic tissue.

KS 4.1 mg/day、尿中 17-OHCS 6.1 mg/day とレニン活性が高値であった。

X線学的検査: DIP は右腎の上方よりの圧排像を示した。CT では肝右葉下後方に直径約 10 cm の境界明瞭な腫瘍がみられ、脂肪の吸収度を示す部が主体を成すが、水とほぼ同一の吸収度を示す部が混在するのが確認された。また腫瘍内に石灰化はなかった (Fig. 7)。血管造影では右下副腎動脈に栄養される hypovascular の腫瘍が認められた。

超音波検査: 肝下部、右腎上部に hyperechoic mass を認めた。

以上より副腎骨髓脂肪腫にはほぼ間違いないと確信するに至ったが、患者はレニン高値の高血圧を示しており、腫瘍による圧排が関与した腎血管性高血圧の可能

Table 1. Surgically removed myelolipomas in Japan

No.	Author	Age (yr.)	Sex	Side	Body habitus	Blood pressure (mmHg)	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	Tohma et al.	56	F	Lt.	Obese	—	—	1930	—
4	Tsukaguchi et al.	41	M	Rt.	—	—	—	1700	—
5	Ishikawa et al.	20	M	Rt.	—	156/100	Pain	150	7
6	Kashimura et al.	36	M	Rt.	Obese	—	Pain	1230	16
7	Kamryo et al.	45	M	Bil.	Obese	120/90	Mass	Rt. 1950 Lt. 1219	21 20.5
8	Tanaka et al.	50	M	Rt.	Obese	120/90	Mass	800	14
9	Sakurai et al.	51	M	Rt.	Obese	160/90	—	430	14
10	Muraki et al.	33	M	Rt.	Obese	120/70	—	270	—
11	Sato et al.	59	M	Rt.	Robust	130/100	—	50	6
12	Sato et al.	33	M	Rt.	Obese	140/90	—	10	3
13	Kim et al.	37	F	Rt.	—	—	—	16	4
14	Present case	47	F	Rt.	Obese	140/90	Pain	225	12
15	Present case	59	M	Rt.	Robust	Hypertension	—	410	12

性も考慮されたため、2月6日、腫瘍切除術を施行した。

手術所見：右季肋下横切開にて経腹膜的に腫瘍に達した。腫瘍の周囲組織からの剝離は容易であった。

摘出標本は 12×8×6 cm. 重量は 410 g であった。断面の大部分は黄色を呈しており、暗赤色の部が島状に散在していた。

病理組織学的所見：腫瘍の大部分は成熟した脂肪組織より構成され、一部に骨髓造血組織に極似た細胞集団がみられた。後者の存在部位は、肉眼上暗赤色にみえた部に一致した。また標本の辺縁に、圧排された副腎皮質組織を確認し、副腎骨髓脂肪腫と診断した (Fig. 8)。

術後経過：順調に経過し第19病日に退院した。なお血漿中のレニン活性は 2.3 ng/ml/hr と正常化し、血圧もほぼ正常 (降圧剤の投与なしにて140/84) となった。

考 察

副腎骨髓脂肪腫は極めて稀な良性腫瘍で通常は無症状に経過する。そのため報告例の大多数は剖検時の偶然発見例であった。剖検時発見率は、0.08～0.4%^{1,2)}とされ、すでに200～300例の報告³⁾があるが、これらの分析によれば性差および左右差はなく、また年齢は30代から60代を中心として17～93歳と広範な分布を示す^{1,4)}。

臨床診断例は、Dickman ら⁵⁾ (1957年) 以後、欧米で41例^{3,6,11-19)}、本邦で13例⁵⁻¹⁰⁾の報告があるのみだが、最近 CT および超音波検査の繁用に伴って臨床報告が増加しており、今後もこの傾向は続くであら

う。

われわれが集計し得た本邦での臨床報告例 (Table 1) では、男子11例、女子4例と明らかに男子優位であり、右側12例、左側2例、両側1例と右側に偏っていた。欧米の報告例 (Table 2) では、やや男子が優位 (26例対15例) だが、左右差はない。

本疾患では身体的特徴として大部分の症例で肥満が認められ、また高血圧症や耐糖能異常の合併率が高い。われわれの2例ではともに肥満があり、1例では高血圧・糖尿病がみられた。

これまでの臨床例の主訴をみると、疼痛・腫瘍・血尿・高血圧が多いが、剖検時発見例の分析から腫瘍がかなり増大しても無症状性であり得ることが知られており²⁰⁾、今後は無症状の臨床例の率が高まるであろう。なお疼痛の原因としては、腫瘍内の出血、壊死や周囲臓器への圧迫が考えられている¹⁸⁾。

画像診断学的には、まず IVP では腫瘍による腎の下方への偏位が認められる¹⁹⁾。腫瘍部は通常 radio-lucent であるが石灰化がみられることもある。これは出血、壊死に続発する二次的変化と考えられる。血管造影では、副腎由来の avascular または hypovascular の腫瘍が示される。CT および超音波検査では、境界明瞭な腫瘍が確認されるが、その内部像は、腫瘍を構築する成分 (脂肪・造血組織・出血巣・石灰化) の構成比および混在のあり方によってやや異なる³⁾。CT 像には、正常脂肪と同等もしくはやや高値の吸収度を示す部分が必ず存在する。加えて、非脂肪組織の混在の具合に従って、より高い吸収度を示す部分がみられる。ただし造血組織や出血巣がびまん性か

Table 2. Clinically diagnosed myelolipomas in English literature

No.	Author	Age (yr)	Sex	Side	Body habitus	Blood pressure (mmHg)	Presenting symptoms	Specimen (g)	Maximum diameter of measurement (cm)
1	Dyckman and Freedman	47	M	Rt.	—	116/94	Pain	1100	18
2	Parsons and Thompson	51	F	Rt.	Obese	140/90	Pain	1250	25
3	Figueras 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	Tulcinaky 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	380	10.5
13	Boudreaux et al.	57	M	Lt.	Obese	—	Pain	5800	24
14	Bozniak 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	Filobos 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	Nephroses syndrome	820	15
28	Snearly et al.	46	F	Lt.	Obese	120/70	Pain	140	8
29	Ishikawa et al.*	20	M	Rt.	Obese	156/100	Pain	150	7
30	Pagana et al.	65	F	Rt.	Obese	180/100	Pain	?	8
31	Siekavizza et al.	39	F	Lt.	—	—	?	?	12
32	Liebman et al.	57	F	Lt.	—	—	Pain, mass	3750	30
33	Adlerberth et al.	71	M	Lt.	—	140/80	Pain	62	6
34	Cintron et al.	54	M	Rt.	—	—	Pain	530	12
35	Vick et al.	37	M	Bil.	—	—	Pain	?	?
36	Vick et al.	67	F	Rt.	—	—	?	?	?
37	Vick et al.	67	F	Rt.	—	—	Mass	?	?
38	Vick et al.	39	M	Rt.	—	—	?	?	?
39	DeBlois and DeMay	40	M	Rt.	Obese	Hypotension	None	?	?
40	Galli and Gaboardi	61	M	Rt.	—	—	Pain	?	?
41	Galli and Gaboardi	71	M	Rt.	—	—	Hematuria	?	?

* same report as No. 5 case in Table 1

つ広範に存在する時は、水に近い吸収度の部が優性となり、CT 上脂肪の存在が読みとりにくなる。このような場合には超音波検査が脂肪の存在を hyperechoic な部として捉えるため有力である。なお正常脂肪織の CT 値には個人差があり、したがって皮下や腹部の脂肪の吸収度と比較することが勧められている^{18,22)}。

以上、副腎骨髓脂肪腫の画像診断学的特徴は、①腎上部腫瘍、②時に石灰化を伴う、③副腎血管由来の

avascular または hypovascular な腫瘍、④CT 上脂肪の吸収度およびより高い吸収度の部が混在、⑤超音波上 hyperechoic と hypoechoic な部が混在、⑥周囲との境界は明瞭などである。

臨床報告例 (Table 1, 2) の最大径は 3~30 cm, 重量は 10~5,900 g と幅広い分布をみるが、直径 3cm 以上であれば、CT, 超音波のいずれでも発見は可能であり、今後は小腫瘍での発見頻度が高まるであろう。

骨髓脂肪腫と鑑別すべき疾患には、副腎皮質癌、高分

化型の脂肪肉腫、嚢胞性奇形腫、リンパ管腫、脂肪腫が挙げられるが、特に前二者が重要である。

Galli ら¹⁹⁾は諸検査より骨髓脂肪腫が示唆され無症候のさいには、穿刺吸引生検を行うことを提唱している。彼らは超音波ガイド下に18ゲージの針を用いて生検を施行し、造血細胞と脂肪細胞を確認、診断を確定させ手術を回避したとしている。同様に deBlois ら²⁰⁾は23ゲージの針による吸引細胞診でも確定診断し得た症例を報告し、細胞診断学上、巨核球の存在が重要だと述べている。

本報告の症例1は疼痛を訴え、また症例2ではレニン高値の高血圧がみられたことより腫瘍切除術を施行したが、今後無症候例で骨髓脂肪腫が疑われる場合にはわれわれも穿刺吸引を試みる考えである。

本症の成因に関しては、(1)骨髓組織の塞栓、(2)胎生期遺残骨髓組織、(3)副腎皮質細胞の化生などの説が唱えられてきたが、現在は(3)が有力である。Plaut⁴⁾は剖検100例の検討から、内分泌学的異常を含む何らかの刺激が原因となって、副腎皮質網状帯細胞が化生を起こすのであらうと述べている。その根拠として、(1)100例中9例に半陰陽・多腺性障害・Cushing病・Addison病・内臓肥大症などの内分泌学的異常がみられたこと、(2)病死した患者の副腎皮質には脂肪細胞やリンパ球の浸潤がみられるが、健康者の場合にはみられないことを挙げている。化生の原因として、Olsson ら¹⁾は高血圧や肥満に伴って起こりやすい組織壊死を主張したが、Boudreaux ら²¹⁾は組織壊死に加えてACTH分泌亢進や男性ホルモン過剰などを挙げている。

いずれにせよ病因解明にはさらに今後の研究を待たねばならないが、そのさい、患者の既往症、合併疾患、内分泌学的異常の有無に関しても精密な記載をしておくことが重要な役割を果たすことになる。

結 語

CT、超音波、血管造影所見の総合により術前診断が可能であった副腎骨髓脂肪腫の2例を報告し、文献的考察を加えた。

文 献

- 1) Olsson CA, Krane RJ, Klugo RC and Selicowitz SM: Adrenal myelolipoma. *Surgery* 73: 665-670, 1973
- 2) McDonnell WV: Myelolipoma of adrenal. *Arch Pathol* 61: 416-419, 1956
- 3) deBlois GG and DeMay RM: Adrenal myelolipoma diagnosis by computed-tomography-guided fine-needle aspiration, A case report. *Cancer* 55: 848-850, 1985
- 4) Plaut A: Myelolipoma in the adrenal cortex. *Am J Pathol* 34: 487-515, 1958
- 5) Dyckman J and Freedman D: Myelolipoma of the adrenal with clinical features and surgical excision. *Mt Sinai J Med* 24: 793-797, 1957
- 6) 田中重人, 梅田 優, 坂本 直, 川喜多順二, 松村俊宏: 副腎 Myelolipoma の1例. *泌尿紀要* 31: 1761-1766, 1985
- 7) 櫻井賢二, 野田正信, 酒井文和, 是永建雄, 蜂谷順一, 河野 敦: 副腎骨髓脂肪腫—CT, 超音波を中心として. *画像診断* 2: 571-574, 1982
- 8) 村木俊雄, 間宮 聡, 渡辺太郎, 松永重昂, 佐藤次良: 糖尿病を併発し、腎の奇形・血中ACTH様免疫活性の高値を伴った副腎骨髓脂肪腫の1例. *内科* 57: 987-989, 1986
- 9) 佐藤郁郎, 林 仁守, 小笠原鉄郎, 中野修道: 超音波検査が診断に有用であった adrenal myelolipoma の2例. *超音波医学* 10: 414-418, 1983
- 10) 金 昌弘, 鍋島晋次, 細木 茂, 木内利明, 黒田昌男, 三木恒治, 清原久和, 宇佐美道之, 古武敏彦: 副腎骨髓脂肪腫の1例. *西日泌尿* 48: 863-866, 1986
- 11) Snearly RG and Ram MD: Myelolipoma of adrenal. *Urology* 11: 411-413, 1978
- 12) Ishikawa H, Tachibana M, Hata M, Tazaki H, Akatsuka S and Iri H: Myelolipoma of the adrenal gland. *J Urol* 126: 777-779, 1981
- 13) Pagana TJ, Karasick SJ, Karasick D and Stahlgren LH: Myelolipoma of the adrenal gland. *Amer J Surg* 141: 282-285, 1981
- 14) Siekavizza JL, Bernardino ME and Samaan NA: Suprarenal mass and its differential diagnosis. *Urology* 18: 625-632, 1981
- 15) Liebman R and Srikantaswamy S: Adrenal myelolipoma demonstrated by computed tomography. *J Comput Assist Tomogr* 5: 262-263, 1981
- 16) Adlerberth A, Hasselgren PO, Lukes P and Stenstrom G: Surgical excision of an adrenal myelolipoma. *Ann Chirurgiae et Gynaecologiae* 72: 76-79, 1983
- 17) Cintron E, Quintero EC, Perez MR, Ramirez-deArellano GA and Manich MSBW: Computed tomography, sonographic and radiographic findings in adrenal myelolipoma. *Urology* 23: 608-610, 1984
- 18) Vick CW, Zeman RK, Mannes E, Cronan JJ and Walsh JW: Adrenal myelolipoma: CT and ultrasound findings. *Urol Radiol* 6: 7-13, 1984
- 19) Galli L and Gaboardi F: Adrenal myelolipoma: report of diagnosis by fine needle aspiration. *J Urol* 136: 655-657, 1986
- 20) Noble MJ, Montagne DK and Levin HS:

- Myelolipoma: an unusual surgical lesion of the adrenal gland. *Cancer* **49**: 952-958, 1982
- 21) Boudreaux D, Waisman J, Skinner DG and Low R: Giant adrenal myelolipoma and testicular interstitial cell tumor in a man with congenital 21-hydroxylase deficiency. *Am J Surg Pathol* **3**: 109-123, 1979
- 22) Friedman AC, Hartman DS, Sherman J, Lautin EM and Goldman M: Computed tomography of abdominal fatty masses. *Radiology* **139**: 415-429, 1981

(1987年4月2日受付)