

両側副腎 Myelolipoma の 1 例

住友病院泌尿器科 (主任部長 : 板谷宏彬)

辻畑 正雄, 申 勝, 三宅 修

伊東 博, 板谷 宏彬

BILATERAL ADRENAL MYEOLIPOMA: A CASE REPORT

Masao Tsujihata, Seung Shin, Osamu Miyake,

Hiroshi Itoh and Hiroaki Itatani

From the Department of Urology, Sumitomo Hospital

A case of bilateral adrenal myelolipoma is presented. The patient was a 40-year-old man in whom a retroperitoneal tumor was unexpectedly found by ultrasonography. Computed tomography revealed bilateral adrenal masses, 14.0 cm in diameter on the right side, and 5.0 cm on the left side, with heterogeneous low density components. Magnetic resonance imaging also revealed a high intensity mass with heterogeneity. Laboratory examination of adrenal function revealed normal results.

We confirmed myelolipoma of bilateral adrenal gland, and performed right adrenalectomy, and left tumor enucleation. The right tumor was 14.0×12.5×10.0 cm in size and 920 g in weight, and the left tumor 5.0×4.5×4.0 cm in size and 50 g in weight.

Pathology disclosed an admixture of mature adipose tissue and hematopoietic elements resembling bone marrow. Histopathological diagnosis was adrenal myelolipoma. This case was the 6th to be reported in the Japanese literature as bilateral adrenal myelolipoma.

(Acta Urol. Jpn. 40: 695-698, 1994)

Key words: Adrenal tumor, Myelolipoma

緒 言

副腎 myelolipoma は、骨髄成分と脂肪成分から成る内分泌非機能性の比較的稀な良性腫瘍である。近年、画像診断の進歩に伴い、偶然発見された症例の報告が増加している。

今回われわれは、人間ドックにおける超音波検査で偶然発見され、術前に副腎 myelolipoma を強く疑い、外科的に切除した両側性の 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 : 40 歳, 男性

主訴 : 両側後腹膜腫瘍精査

既往歴 : 1989 年 1 月より高血圧症, 神経性胃炎にて
通院中

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 1992 年 9 月, 人間ドックにおける腹部超音波検査で, 右腎上極に腫瘍を指摘され, 当科を受診し

た。後腹膜腫瘍の疑いにて, 1992 年 9 月 17 日入院となる。

入院時現症 : 身長 166cm, 体重 80 kg, 肥満傾向あり, 血圧 128/82mmHg, 脈拍 64 回/分整, 胸腹部理学的所見異常なし。右側腹部に腫瘍を触知する。表在リンパ節触知せず。

入院時検査所見 : 末梢血一般, 血液生化学検査は異常を認めない。内分泌学的検査においても, 血中アドレナリン 0.001ng/ml, ノルアドレナリン 0.151 ng/dl, コルチゾール 20.3 μg/dl, アルドステロン 15 ng/dl, ACTH 61 pg/ml, 尿中アドレナリン 1.836 μg/ml, ノルアドレナリン 19.589 μg/ml で, すべて正常範囲内であり, 機能性副腎腫瘍を疑わせる所見はなかった。甲状腺機能, 副甲状腺機能や耐糖能にも異常を認めず, 各種腫瘍マーカーも正常範囲であった。

画像診断 : 腹部 CT 検査 ; 両側副腎と一致する部位に比較的境界明瞭な腫瘍を認める。右側は 14×11 cm, 左側は 5.0×4.0 cm であった。内部は, heterogeneous で fat density と soft tissue density が

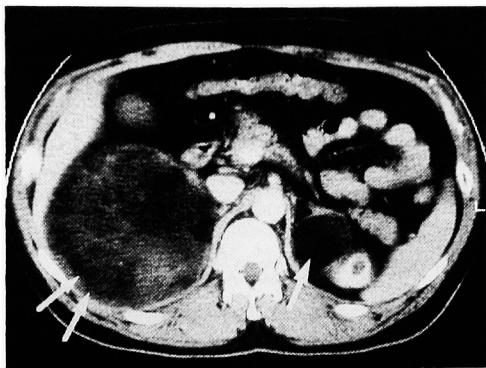


Fig. 1. Enhanced CT shows bilateral heterogeneous mass consisting of mixture of fatty density and high density areas. (arrow)

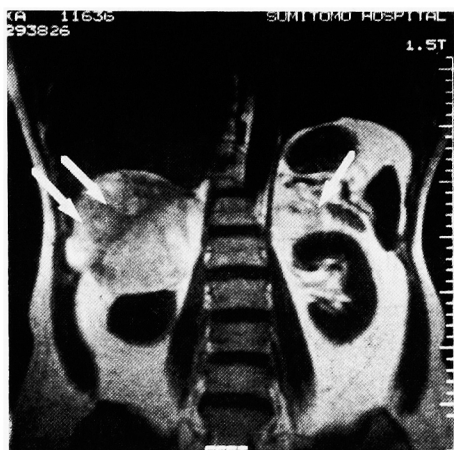


Fig. 2. MRI T1 weighted image shows high and low intensity mass in the bilateral adrenal gland (arrows).

混在している (Fig. 1).

腹部 MRI 検査: T1 強調像で, 両側副腎の部位に, capsule をもつ, high および low intensity が混在した腫瘍を認める. 右側は, 腎を下方に著明に圧排している (Fig. 2). T2 強調像においても, heterogeneous mass を認め, 脂肪成分を含む腫瘍が考えられる.

血管造影 腹部大動脈造影で, 右腎動脈が腫瘍により下方へ圧排伸展され, 両側腫瘍ともほぼ hypovascular である. また左腎には異常血管を認めない. 腹腔動脈造影にて右下横隔動脈より分岐する上副腎動脈が main feeding と考えられた (Fig. 3).

以上より両側副腎 myelolipoma を強く疑い, 1992 年10月12日右副腎摘除術, 左腫瘍核出術を施行した.

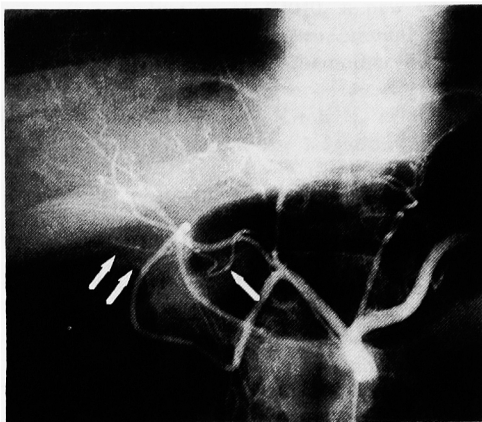


Fig. 3. Celiac angiography shows right inferior phrenic artery is the main feeding of right adrenal tumor

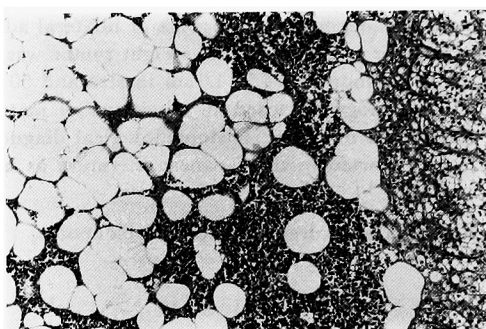


Fig. 4. Histopathological findings showed that the tumor consisted of fatty area with some adrenal cortex and hematopoietic tissue.

手術所見: 腹部正中切開にてまず右側より行った. 腫瘍は周囲組織との癒着をほとんど認めず, 剥離は smooth に行えた. その際に副腎の同定は困難にて一緒に摘除したものと考えられた. 左側は, 正常副腎を大部分残存させ腫瘍摘除が可能であった.

摘出標本・腫瘍は右側が大きき $14.0 \times 12.5 \times 10.0$ cm, 重量 920 g で, 左側が大きき $5.0 \times 4.5 \times 4.5$ cm, 重量 50 g であった. 腫瘍表面平滑, 弾性軟で黄赤色を呈する被膜を有していた. 剖面は脂肪様の黄褐色調だったが, 一部に赤褐色部位を認めていた.

病理検査所見: 脂肪組織の間質に巨核球, 赤芽球などの骨髓造血細胞が認められ, 副腎 myelolipoma と診断された (Fig. 4).

術後, 副腎皮質ホルモン投与などの補助療法はおこ

っていない。

現在, 術後10カ月目で外来通院中だが, CT および MRI 上再発所見を認めない。きた, 内分泌学的検査においても異常を認めない。

考 察

副腎 myelolipoma は, 1905年 Gierke¹⁾が, 「副腎に原発する脂肪腫内に骨髓系細胞の増殖を伴う腫瘍」として最初に報告し, 1929年に Oberling²⁾により命名された造血組織と分化し脂肪細胞よりなる比較的稀な良性腫瘍である。しかし, 近年画像診断の進歩, 普及に伴い, 偶然発見され外科的に切除される症例が増加している。現在までに, 90例の報告があり³⁻⁵⁾, 50歳代の症例が最も多く, 性差は認めない。左右差は, 右側が左側より3倍多い³⁾が, 原因不明である。報告例のほとんどが片側性で, 両側例は自験例を含め本邦6例にすぎない⁶⁻⁸⁾。

本症の発生原因は不明であるが, 1)骨髓細胞の胎児期遺残, 2)骨髓細胞の塞栓, 3)副腎皮質細胞化生などの説があげられている。その内最も有力な説は, 副腎皮質細胞化生であり, 副腎皮質内の reticulum cell の metaplasia により発生するとする考え方である。また本症に, Addison 病, Cushing 病, 21-hydroxylase 欠損症, 17-hydroxylase 欠損症を合併した症例があることより ACTH の過剰分泌も示唆され⁹⁾, とくに両側性の発症に ACTH による副腎への刺激の関与も考えられている。また Plaut¹⁰⁾は重篤な内分泌異常を有する症例では巨大で両側性の myelolipoma が多いとしている。さらに, Olsson¹¹⁾ Ayyat¹²⁾らは, 肥満・高血圧・熱傷・消耗性疾患などによって組織壊死が起こり, この壊死物質が metaplasia の誘因になると述べている。自験例でも, 肥満・高血圧を認めており, 両側性の報告6症例においても5例に肥満がある。しかしながら, 現時点では統一した見解がえられていないのが現状であり, 本症の発生原因については今後の解明が待たれる。

本症の画像診断上の特徴は, 腹部超音波検査で境界明瞭な hyperechoic mass として描出されること, 腹部 CT では辺縁平滑, 境界明瞭で内部構造が脂肪・造血組織・出血巣の混在のため inhomogeneous pattern の腫瘍として認められること, また MRI でも同様に T₁, T₂ 強調像とも周囲の脂肪組織と同程度の high intensity を示すが, 造血組織や出血巣の分布が一様でない場合は不均一な内部構造をもつ腫瘍として描出されること, などがあげられる。

治療方針としては, Dieckmann ら¹³⁾は, 圧排症状

をもつもの, 腫瘍が大きく, 出血をきたしてショックを起こす可能性のあるもの, 他の悪性腫瘍との鑑別が困難なものなどは, 手術適応とし, 小さく無症状のものは経過観察でよいとしている。Galli, Gaboardi¹⁴⁾は無症状の症例には積極的に biopsy を行い確定診断がえられたなら経過観察をすればよいと提唱しており, 近年 CT もしくは超音波ガイド下での fine needle biopsy または aspiration biopsy がとくに欧米で盛んに行われている。しかし aspiration biopsy で adenocarcinoma の組織をえて後に肺原発腺癌の副腎転移であることが判明した症例¹⁵⁾も報告されており, 悪性の場合には腫瘍細胞の播種を起こす危険性があることから, その適応には充分慎重でなければならない。両側腫瘍摘除術の適応について Kraimps ら¹⁶⁾は, 診断がつかない場合, 腫瘍が症候性である, 両側ともに大きな腫瘍である, としている。自験例の場合は, 両側とも ϕ 5 cm 以上と大きかったこと, 一側は正常の副腎を大部分残すことが可能であったことより両側摘除した。

両側性腫瘍の外科的手術は, 術後副腎不全をきたす可能性があるため慎重に行わなければならない。

結 語

人間ドックにおける腹部超音波検査で偶然発見され, 今回右副腎摘除術, 左腫瘍核出術を施行した両側副腎 myelolipoma の1例を経験したので文献的考察を加え報告した。

本論文の要旨は第144回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

文 献

- 1) Gierke E: Über Knochenmarksgewebe in Nebenniere. Beitr Pathol Anat Suppl 7: 311-312, 1905
- 2) Oberling C: Les formations myelo-lipomateuses. Bull Assoc Fr Cancer 18: 234-246, 1929
- 3) 辻村 晃, 小角幸人, 奥山明彦: 副腎骨髓脂肪腫の1例, 西日泌尿 53: 1251-1254, 1991
- 4) 小口健一, 長谷行洋, 篠田育男, ほか: 副腎骨髓脂肪腫の1例. 泌尿紀要 37: 55-58, 1991
- 5) 坂上和弘, 今津哲央, 西村和郎, ほか: 石灰化をもった副腎骨髓脂肪腫の1例. 西日泌尿 55: 941-944, 1993
- 6) 前川たかし, 阪倉民浩, 仲谷達也, ほか: 両側副腎骨髓脂肪腫の1例. 日泌尿誌 80: 485, 1989
- 7) 田村信一, 滝沢謙治, 鈴木 真, ほか: 両側副腎に発生した myelolipoma の1例. 臨放 34.

- 1517-1520, 1989
- 8) 望月得郎, 中村健治, 高田恵二, ほか: 両側性の副腎 Myelolipoma の1例. 臨放 35: 995-998, 1990
- 9) Oliva A, Duarte B, Hammadeh R, et al.: Myelolipoma and endocrine dysfunction. Surgery 103: 711-715, 1988
- 10) Plaut A: Myelolipoma in the adrenal cortex. Am J Pathol 34: 485-515, 1958
- 11) Olsson CA, Krane RJ, Klugo RG, et al.: Adrenal myelolipoma. Surgery 73: 665-670, 1973
- 12) Ayyat F: Myelolipoma of adrenal gland. Urology 16: 415-418, 1980
- 13) Dieckmann KP, Hamm B, Pickartz H, et al.: Adrenal myelolipoma: Clinical radiologic, and histologic features. Urology 29: 1-8, 1987
- 14) Galli L and Gaboardi F: Adrenal myelolipoma: report of diagnosis by fine needle aspiration. J Urol 136: 655-657, 1986
- 15) Kristopher MG, Patricia NB and Thompson WR: Adenocarcinoma metastatic to the adrenal gland simulating myelolipoma: CT evaluation. J Comput Assist Tomogr 9: 820-821, 1985
- 16) Kraimps J, Marechaud R, Levillain P, et al.: Bilateral symptomatic adrenal myelolipoma. Surgery 111: 114-117, 1992

(Received on January 17, 1994)
(Accepted on March 28, 1994)