

著明な嚢胞性変化を伴った褐色細胞腫の1例

京都府立医科大学泌尿器科学教室 (主任: 渡辺 決教授)

稲葉 光彦, 落合 厚, 南口 尚紀, 納谷 佳男

浮村 理, 小島 宗門, 渡辺 決

A CASE OF PHEOCHROMOCYTOMA WITH A LARGE PSEUDOCYST

Mitsuhiko INABA, Atsushi OCHIAI, Naoki MINAMIGUCHI, Yoshio NAYA,

Osamu UKIMURA, Munekado KOJIMA and Hiroki WATANABE

From the Department of Urology, Kyoto Prefectural University of Medicine

We report a case of pheochromocytoma with a markedly large pseudocyst. A 51-year-old man with the complaint of headache and palpitation was referred to our hospital. Ultrasonography (US) revealed a right adrenal cystic mass. Computerized tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) confirmed an adrenal cyst. MRI showed a high intensity mass in both T1 and T2-weighted-images, suggesting an adrenal hemorrhagic cyst. ^{131}I -meta-iodo-benzylguanidine (MIBG) scintigraphy showed a prominent accumulation at the right adrenal lesion. Considering the abnormal elevation of catecholamines in blood and urine samples, we performed right adrenalectomy with the clinical diagnosis of pheochromocytoma.

^{131}I -MIBG scintigraphy was the most important diagnostic tool in the diagnosis of pheochromocytoma.

(Acta Urol. Jpn. 44 : 403-406, 1998)

Key words: Cystic pheochromocytoma, Adrenal cyst, ^{131}I -MIBG scintigraphy

緒 言

褐色嚢胞腫の多くは充実性腫瘍であり、著明な嚢胞性変化を呈するものは稀とされている。今回私たちは、著明な嚢胞性変化を呈し、超音波断層法・CT・MRIによる画像診断では副腎嚢胞との鑑別が困難であったが、その診断に ^{131}I -MIBGシンチグラフィが有用であった褐色細胞腫の1例を経験したので報告する。

症 例

患者: 51歳, 男性

主訴: 頭痛, 動悸

現病歴: 1992年頃より、5~10分程度持続する頭痛および動悸を月1回程度認めていたが放置していた。1996年初めより、これらの症状の出現頻度が10日に1回程度に増加したため近医を受診した。しかし、受診時には頭痛・動悸といった症状はなく、血圧も正常であったため経過観察されていた。1996年6月には頭痛および動悸発作が毎日出現するようになり、他院を受診した。その際、血中および尿中アドレナリン・ノルアドレナリン・ドーパミンの異常高値を認め、超音波断層法・CT・MRIにて右腎上方に嚢胞性腫瘍を指摘され、副腎褐色細胞腫を疑われ、精査・治療のため当科へ紹介・入院となった。

既往歴: 特記すべきことなし

家族歴: 副腎疾患はなく、母は高血圧にて加療中

入院時現症: 身長 159 cm, 体重 58 kg. 胸腹部理学所見に異常なし。正常時収縮期血圧は 90~100 mmHg, 頭痛・動悸発生時の収縮期血圧は 220 mmHg 以上と高値を呈した。多汗症は認めなかった。

入院時検査成績: 血中アドレナリン 0.77 ng/ml (<0.17), 血中ノルアドレナリン 2.9 ng/ml (0.15~0.57), 尿中アドレナリン 129 $\mu\text{g}/\text{day}$ (1~23), 尿中ノルアドレナリン 245 $\mu\text{g}/\text{day}$ (29~120) は、いずれも高値を呈していたが、血中ドーパミン・尿中ドーパミン・尿中 VMA・尿中 HVA は正常範囲内であった。血糖値は正常で、その他血液生化学・内分泌検査には特記すべき異常はなかった。

画像検査: 超音波断層法では、右腎上方に内部無エコー域の嚢胞性腫瘍を認めた。上腹部造影 CT では、右腎上方に内部均一な直径 7.8×7.7 cm の嚢胞性腫瘍を認め、その嚢胞壁は濃染されていた。上腹部 MRI (Fig. 1) では、T1・T2 強調画像とも右腎上方に高信号域を呈する嚢胞性腫瘍を認めた。嚢胞壁は薄く、一部にやや肥厚を認めるのみであった。 ^{131}I -MIBG シンチグラフィでは、静注直後の像では肝臓と嚢胞壁への集積は同程度であるが、24時間後の像 (Fig. 2) では肝臓の集積に比べて嚢胞壁に多くの集積

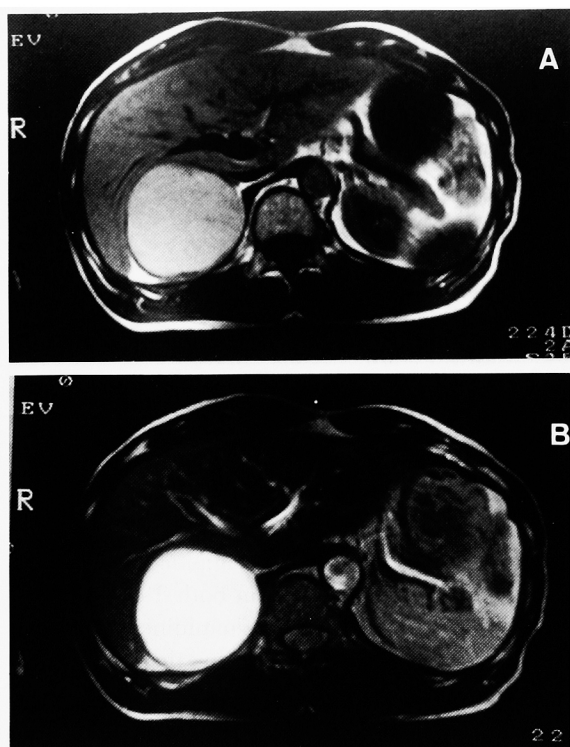


Fig. 1. MRI images of right adrenal tumor. A, T1-weighted transverse image. An adrenal cystic tumor with relatively high signal intensity is visualized. B, T2-weighted transverse image. An adrenal cystic tumor with high signal intensity is visualized.

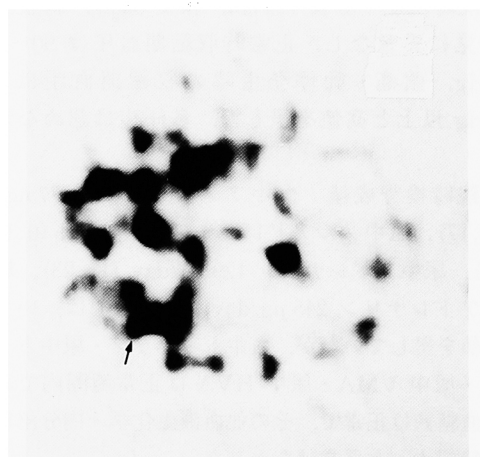


Fig. 2. Scintigram using ^{131}I -meta-iodo-benzylguanidine (MIBG). Transverse scintigraphic view 24 hrs. after i.v. administration of ^{131}I -MIBG showed an intense accumulation in the cystic wall of the right adrenal mass.

が認められた。

以上より嚢胞を形成した右副腎褐色細胞腫と診断した。術前処置として α ブロッカーの投与、および循環血液量の測定に基づき、術前過剰輸血を400 ml行った後¹⁾、全身麻酔下に手術を施行した。

手術所見：第10肋骨上切開にて経胸腹式で腫瘍に到達した。画像所見と同様に薄い嚢胞壁をもつ嚢胞を認め、術中に破裂しないように、まず嚢胞液を吸引してから摘出した。嚢胞液を180 ml吸引したが、吸引前後での血圧の変動は認められなかった。吸引した嚢胞液は暗赤色で出血性嚢胞が疑われた。内容液の内分泌検査ではアドレナリン 800 ng/ml、ノルアドレナリン 3,700 ng/ml、ドーパミン 20 ng/ml と異常高値を呈していた。吸引後、正常副腎組織の一部が嚢胞壁に接して認められた。嚢胞は周囲との癒着もなく容易に摘出できた。

摘出標本：肉眼的所見 (Fig. 3) では著明な嚢胞性変化を伴う腫瘍で、薄い嚢胞壁を認めるのみであった。病理組織学的所見では、HE染色 (Fig. 4) で両染色胞体を有する多角形の腫瘍細胞がシート状に増殖し、全周性に嚢胞壁の内腔面を形成していた。神経分泌顆粒を染めるクロモグラニンAに対する免疫染色では、HE染色における腫瘍細胞の細胞質に一致してそ

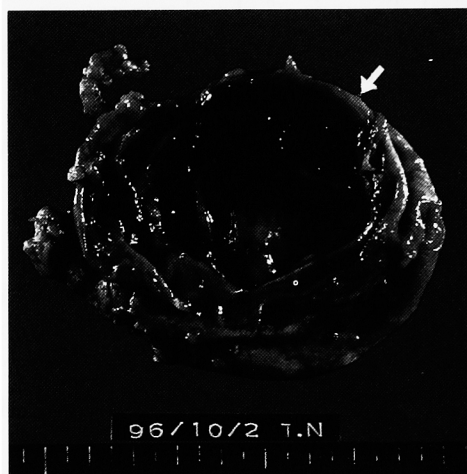


Fig. 3. Gross appearance of the surgical specimen. The cystic wall of the adrenal tumor was very thin without nodules.

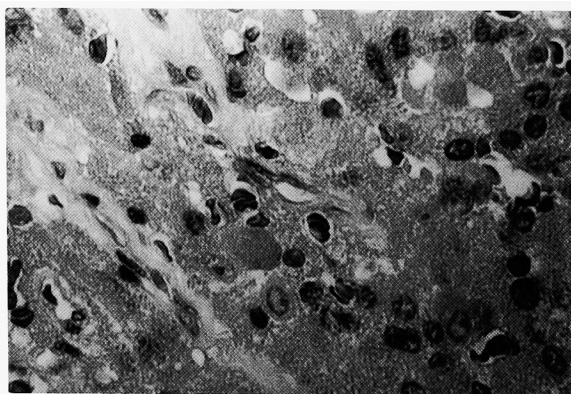


Fig. 4. Microscopic appearance (H.E. stain, $\times 400$). The inner surface of the cystic wall was lined by a sheet pattern of polygonal cells. These cells had amphophilic cytoplasm.

の濃染が認められ、嚢胞を形成する褐色細胞腫と診断した。

術後経過: 手術後、血中・尿中のカテコラミンはすべて正常化し、頭痛・動悸といった症状や高血圧発作も消失した。

考 察

副腎に嚢胞性病変が発生することは比較的稀で、剖検例では0.07%と報告されている²⁾。本症例は副腎の嚢胞性病変を parasitic cyst, epithelial cyst, endothelial cyst, pseudocyst に分類する Foster 分類³⁾では pseudocyst に相当した。

pseudocyst は、正常組織内あるいは腫瘍などの病的副腎組織内での出血および壊死を契機に、液化・吸収の過程を経て、嚢胞壁の形成に至り発生するものとされている。副腎の嚢胞性病変の39%はこのタイプのものである³⁾。

褐色細胞腫の多くは充実性腫瘍であり、しばしば内部に出血・壊死や小さな嚢胞性変化を伴うことがあるが、著明な嚢胞形成を示すことは稀である。著明な嚢胞性変化を伴っていた副腎褐色細胞腫の本邦報告例は、私たちが調べ得たかぎり、1980年の三輪らの報告⁴⁾に始まり、本症例を含めると16例の報告がされているにすぎなかった⁵⁾。このうち高血圧を呈したものは6例（うち発作性が4例）、血中アドレナリン・ノルアドレナリンの上昇を呈したものはそれぞれ5例、6例であったが、いずれの場合においても、その検査結果のみで褐色細胞腫と診断するのは困難であった。

褐色細胞腫が嚢胞性変化を示す場合、嚢胞壁は比較的厚く、多嚢胞性で厚い隔壁を伴っていて、CT・超音波検査などの画像検査で容易に診断できることが多い。しかし、本症例では著明な嚢胞性変化を示し、その壁も薄く、CTと超音波では副腎嚢胞に典型的な所見であった。最近、MRIが褐色細胞腫の診断に有用とする報告が多くみられる⁶⁾。MRIでは褐色細胞腫および副腎嚢胞はいずれもT1強調画像で低信号域、T2強調画像で高信号域^{7,8)}を呈するとされ、出血性嚢胞はT1・T2強調画像ともに高信号域⁹⁾を呈するとされる。本症例は、T1・T2強調画像ともに高信号域を呈したため、MRIでは出血性嚢胞が疑われた。このように超音波断層法、CT・MRIの所見はいずれも褐色細胞腫に非典型的であり、これらの画像検査から褐色細胞腫と診断することは困難であった。

紅粉ら⁴⁾は、副腎の嚢胞性腫瘍で、各種検査にて褐色細胞腫が疑われるが確定診断が困難な場合には、術前の経皮的嚢胞穿刺による内容液の内分泌学的検査が診断に有用であると報告している。しかし、褐色細胞腫を穿刺すると重篤な血圧変動や出血を引き起こす危険性があり、なかには致死性であったとの報告¹⁰⁾が

あることを忘れてはならない。したがって、褐色細胞腫が否定できていない段階における経皮的副腎嚢胞穿刺は、禁忌とすべきであろう。

1980年代以降、超音波やCTなどの画像診断法が急速に普及した結果、偶然発見される副腎腫瘍（副腎偶発腫瘍）の頻度が高くなってきている。副腎偶発腫瘍の取り扱いについては、その腫瘍が内分泌学的に非活性であり、組織学的に良性であるならば、手術は不要で経過観察が可能であると考えられる¹¹⁾。したがって、内分泌学的に非活性の副腎腫瘍に対して、その組織学的診断を得るために当教室では超音波穿刺術による経皮的副腎腫瘍生検を行っている^{12,13)}。しかし、すでに述べたように褐色細胞腫に対する生検は禁忌となるので、その否定が生検前に必須となる。私たちの経験からは、生検前の褐色細胞腫の診断における¹³¹I-MIBGシンチグラフィの診断精度はきわめて高く、¹³¹I-MIBGシンチグラフィが褐色細胞腫の鑑別のために最も有用であり、副腎腫瘍の生検前には必須の検査であると考えている。本症例のような嚢胞性変化をきたした褐色細胞腫においても、その嚢胞壁が薄いにもかかわらず褐色細胞腫成分を多く含むことにより、¹³¹I-MIBGシンチグラフィにおいて集積がみられ、他の画像診断に比べて褐色細胞腫の診断により有用であった。このように、¹³¹I-MIBGシンチグラフィを行うことで、誤って褐色細胞腫を穿刺することなく、生検による不必要な事故を避けることができたと考えられる。

結 語

著明な嚢胞性変化を伴った褐色細胞腫の1例を経験した。褐色細胞腫の診断には、¹³¹I-MIBGシンチグラフィが最も有用であった。

文 献

- 1) 渡辺 決, 斎藤雅人, 猪狩大陸, ほか: 褐色細胞腫の外科的検討 (1), 褐色細胞腫患者の循環血流量. 日泌尿会誌 **66**: 418-426, 1975
- 2) Wahl HR: Adrenal cysts: Am J Pathol **27**: 758, 1951
- 3) Foster DG: Adrenal cysts: review of literature and report of cases. Arch Surg **92**: 131-143, 1966
- 4) 三輪 誠, 小原信夫, 松本哲夫, ほか: 褐色細胞腫の1例. 泌尿紀要 **26**: 835-844, 1980
- 5) 紅粉睦男, 松田 彰, 松谷久美子, ほか: 著明な嚢胞形成を呈し経皮的副腎嚢胞穿刺によるカテコラミン測定が診断に寄与した褐色細胞腫の1例. 綜合臨 **43**: 1251-1253, 1994
- 6) 岸 洋一, 鈴木 誠, 東原英二, ほか: 副腎疾患のMRI診断. 日泌尿会誌 **78**: 2016-2022, 1987
- 7) Renig JW, Doppman JL, Dwyer A, et al.: MRI of indeterminate adrenal masses. Am J Roentgenol

- 147: 493-496, 1986
- 8) 伊藤哲之, 藤本博行, 大西裕之, ほか: 副腎嚢腫の2例. 画像診断の意義について. 泌尿紀要 **35**: 1161-1166, 1989
- 9) Falk HM, Bloem JL, Strake L, et al.: Magnetic resonance imaging of adrenal glands. Radiographics **7**: 343-370, 1987
- 10) Casola G, Nicolet V, Sonnenberg E, et al.: Unsuspected pheochromocytoma: risk of blood-pressure alterations during percutaneous adrenal biopsy. Radiology **159**: 733-735, 1986
- 11) 渡辺 決, 斎藤雅人, 小島宗門: 副腎偶発腫瘍の手術適応. ホルモンと臨 **44**: 361-368, 1995
- 12) Kojima M, Saitoh M, Watanabe H, et al.: Percutaneous biopsy for adrenal tumors using ultrasonically guided puncture. Tohoku J Exp Med **172**: 333-343, 1994
- 13) 落合 厚, 小島宗門, 渡辺 決, ほか: シンチグラフィと腫瘍生検を用いた副腎偶発腫瘍の診断と手術適応の検討. 日泌尿会誌 **88**: 807-814, 1997
- (Received on December 1, 1997)
(Accepted on March 26, 1998)