

腹腔鏡下副腎摘除術を施行しえた 褐色細胞腫自然破裂の 1 例

金城 孝則, 種田 建史, 米田 傑, 竹澤健太郎
野村 広徳, 鄭 則秀, 高田 晋吾, 松宮 清美
大阪警察病院泌尿器科

SUCCESSFUL TREATMENT OF SPONTANEOUS RUPTURE OF PHEOCHROMOCYTOMA WITH LAPAROSCOPIC ADRENALECTOMY : A CASE REPORT

Takanori KINJO, Takeshi OIDA, Suguru YONEDA, Kentaro TAKEZAWA,
Hironori NOMURA, Norihide TEI, Shingo TAKADA and Kiyomi MATSUMIYA
The Department of Urology, Osaka Police Hospital

A 46-year-old man had sudden onset of severe left hypochondrial pain and went into shock following hospitalization. Computed tomography, echocardiography, and endocrinological tests revealed spontaneous rupture of a pheochromocytoma associated with catecholamine cardiomyopathy. After he underwent conservative management with fluid replacement, his blood pressure stabilized and cardiac function improved. Twenty-two days later, he was referred to our hospital. After admission, as his circulatory dynamics was stable, we performed elective laparoscopic left adrenalectomy. He was discharged on the tenth postoperative day. Spontaneous rupture of a pheochromocytoma is very rare : laparoscopic surgery for this condition has been reported only on 2 previous occasions worldwide.

(Hinyokika Kiyo 59 : 775-779, 2013)

Key words : Spontaneous rupture, Pheochromocytoma

緒 言

褐色細胞腫の自然破裂は非常に稀であり、循環動態の急激な変化から死に至ることもしばしばである。治療は開腹手術が大半を占めるが、今回われわれは腹腔鏡下副腎摘除術を施行しえた褐色細胞腫自然破裂の 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 : 46歳, 男性
主 訴 : 左季肋部痛
既往歴・家族歴 : 特記事項なし
現病歴 : 2011年 8 月, 突然の左季肋部痛にて近医受診し, CT 検査で左副腎出血と診断された。直後にショック状態となり緊急入院となった。精査の結果, 左室壁運動はびまん性に高度に低下し, ejection fraction (EF) は25%で肺水腫を伴い, 褐色細胞腫自然破裂に伴うカテコラミン心筋症と診断された。保存的加療にて EF 66%と循環動態は安定し, 手術目的に第22病日, 当科紹介となった。
入院時現症 : 身長 174 cm, 体重 64 kg, BT 36.5°C, BP 112/74 mmHg, HR 91/min, 血圧は正常だが, 頻

脈を認め, 以前から突然の発汗を自覚していた。

入院時検査成績 : 貧血, 炎症所見, 生化学異常認めず, 随時血糖 104 mg/dl と血糖値も正常であった。内分泌学的検査では破裂時にはカテコラミンのほか, コ

Table 1. Endocrinological tests

	破裂時	当院 来院時	正常値
アドレナリン (ng/ml)	60.14	0.21	0-0.1
ノルアドレナリン (ng/ml)	164.16	0.41	0.1-0.5
ドーパミン (ng/ml)	1.49	<0.02	0-0.03
コルチゾール (μg/dl)	248	8.5	4.5-21.1
ACTH (pg/ml)	48.7	15	7.4-55.7
アルドステロン (ng/dl)	107	8.8	3.6-24
レニン (ng/ml/hr)	5.4	0.9	0.2-2.7
尿中 VMA (mg/day)	135.66	—	1.5-4.9
尿中アドレナリン (μg/day)	3,694.3	—	3-41
尿中ノルアドレナリン (μg/day)	13,770.4	—	31-160
尿中ドーパミン (μg/day)	1,140.2	—	280-1,100
尿中メタネフリン (mg/day)	20.05	4.3	0.04-0.18
尿中ノルメタネフリン (mg/day)	19.44	2.2	0.1-0.28



Fig. 1. CT shows the ruptured pheochromocytoma with intratumoral hemorrhage and the inflammation of perinephric fat tissue.

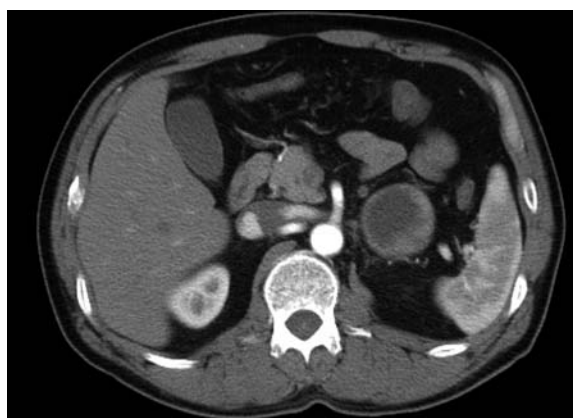


Fig. 3. Enhanced CT shows shrinkage of the ruptured pheochromocytoma and absorption of the intratumoral hemorrhage. Another finding is marked vanishment of the inflammation.

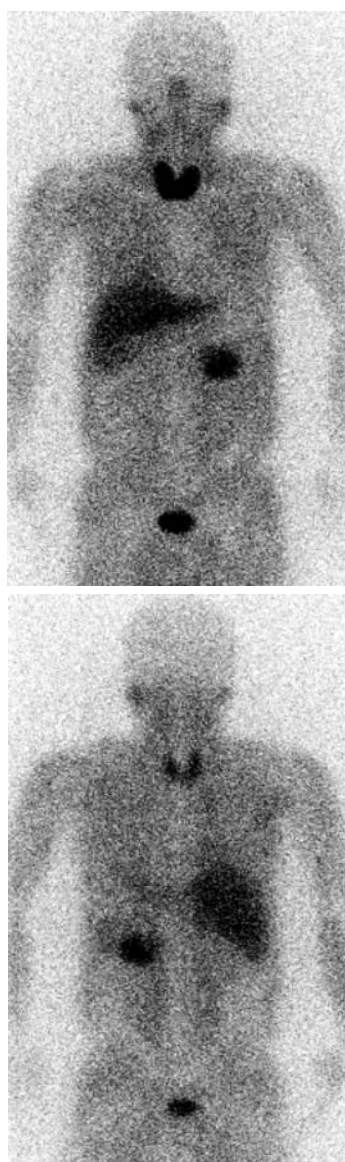


Fig. 2. ^{131}I -MIBG scintigraphy showed uptake in the left supra-renal region.

ルチゾール、アルドステロンなども高値を認めたが、保存的加療後の当院来院時採血ではカテコラミン以外のホルモン値は正常化しており、カテコラミン値も大幅に低下していた (Table 1)。

画像診断：破裂時の造影 CT は左副腎に血腫の形成と周囲の脂肪濃度の上昇を認めた (Fig. 1)。 ^{131}I -MIBG シンチグラフィーでは、左副腎に一致して高度な集積を認めた (Fig. 2)。

入院後経過：循環動態が安定していたため待機手術とし、ドキサゾシンを漸増し、最終的に 1 日 10 mg まで増量した。術前 CT にて評価したところ、破裂時と比較して血腫は縮小し、周囲脂肪組織の炎症所見は消失していたため (Fig. 3)、腹腔鏡下左副腎摘除術の方針とした。

手術所見：右半側臥位にて 3 カ所ポートを設置し、腹腔鏡下に手術を開始した。手術開始時は systolic BP 110 mmHg 台、HR 90/min 台と入院時と変化なかった。壁側腹膜を脾臓外側から血管交差部まで切開し、下行結腸を内側に脱転しつつ後腹膜腔を展開した。臍下部と左腎内側の間に腫瘍を認め、臍の左方に補助ポートを設置した。腫瘍内側の癒着は軽度であったが、外側から背側は癒着が高度で剥離に難渋した。この際血圧は systolic BP 140 mmHg 台、HR 120/min 台まで上昇したが薬剤による降圧は必要としなかった。左副腎静脈を処理し、正常副腎と一塊に摘除した。手術時間 3 時間 24 分、出血量は 250 ml だった。

摘出標本：正常副腎を辺縁に圧排する 45×40 mm の赤褐色調腫瘍性病変を認めた (Fig. 4)。切除重量は 59 g だった。

病理学的所見：類円形ないしは紡錘形の核を有し好酸性で顆粒状の細胞質からなる細胞が、線維血管性間質を有しながら胞巣状に増生する zellballen pattern を呈していた。以上より術前診断と同様、褐色細胞腫と

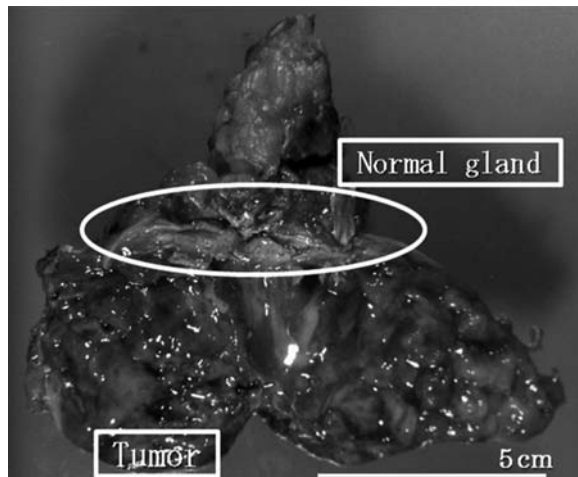
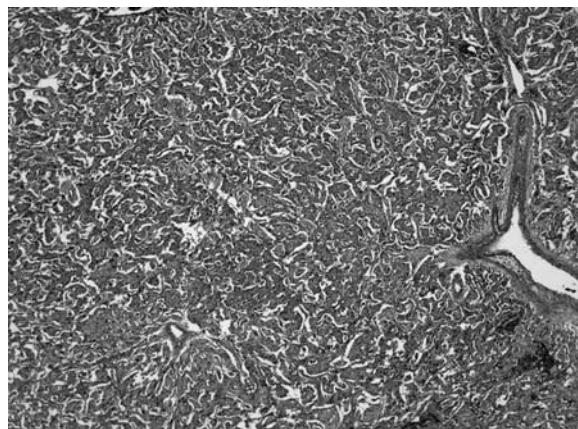
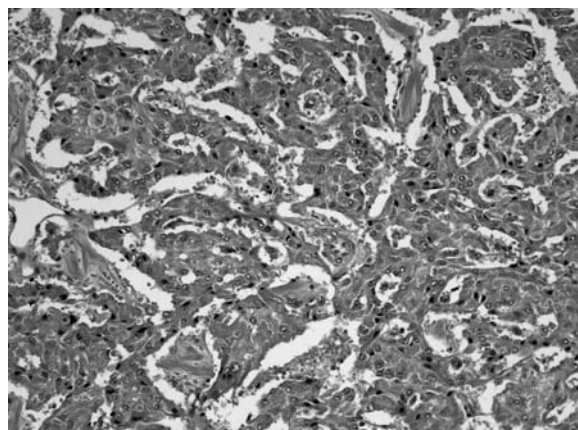


Fig. 4. Macroscopic specimen showed the red-brown mass lesion compressed a normal gland.



A



B

Fig. 5. Histopathological examination revealed pheochromocytoma with a zellballen pattern (hematoxylin-eosin staining, A: magnification $\times 40$, B: magnification $\times 200$).

診断した (Fig. 5).

術後経過: 術後2日間は血圧維持のためカテコラミンの補充を必要としたが, systolic BP 110 mmHg 台, HR 70/min 台と安定し, また以前の突然の発汗など

Table 2. Clinical characteristics of 72 patients with spontaneous rupture of pheochromocytoma

年齢	15-84歳 (平均50.5歳)
性別	男39 (54%), 女33 (46%)
患側	右39 (54%), 左31 (43%), 両側2 (3%)
症状	腹痛56 (78%), ショック37 (51%), 胸痛16 (22%), 腰痛13 (18%)
出血形式	後腹膜39 (54%), 腫瘍内18 (25%), 腹腔内15 (21%)
治療	緊急手術35 (48%), 待機手術20 (28%), TAE後待機手術5 (7%), 保存的加療12 (17%)
予後	生存53 (74%), 死亡19 (26%)
致死率	非待機手術40%, 待機手術0%

の自覚症状なく術後10日目に退院した.

考 察

褐色細胞腫の自然破裂はきわめて稀である. 海外報告は Habib ら¹⁾が53例を検討しているが, 今回われわれはその報告以降の海外報告4例²⁻⁵⁾と自験例を含めた本邦報告15例⁶⁻¹⁹⁾を加え, 検討した (Table 2).

平均年齢は50.5歳 (15~84歳), 男女差と腫瘍の左右差は認めず, 両側発生が2例であった. 症状は腹痛が最多を占め, 約半数でショックが生じており, 循環動態に与える影響が大きいと考えられた. この原因は腫瘍の急激な増大, 内部への出血によって腫瘍内圧が上昇し, 腫瘍被膜が断裂, 大量のカテコラミンが放出される. 次いで腫瘍内血管の収縮から腫瘍壊死が生じ, カテコラミン放出の減少, 以前からの循環血液量の減少, 急激な出血によってショックが生じるからとされる²⁰⁾. 本症例ではカテコラミンの大量放出時にカテコラミン心筋症を生じたため心不全となりショックを起こしたと考えられた.

出血は腫瘍内出血が18例, 後腹膜出血が39例, 腹腔内出血が15例であった.

手術は緊急手術が35例, 待機手術が20例, TAE後の待機手術が5例, 保存的加療による経過観察が12例であった.

予後は生存が53例, 死亡が19例だった. 待機手術, 非待機手術 (緊急手術, 保存的加療) で比較すると非待機手術では死亡率が47例中の19例の40%であったのに対し, 循環動態安定後の待機手術では25例中の0例で0%であった.

以上より予後に関して循環動態安定後の手術が望ましいと言える. 破裂時には循環血液量の補正と後負荷の軽減のために輸液と $\alpha 1$ ブロッカーによる治療が主体となるが, それでも循環動態が安定しない場合はTAEを行ってでも循環動態安定後の待機手術がよいとしている報告もある¹⁾.

手術術式に関しては開腹手術がほとんどであり, 調

Table 3. Three cases of spontaneous ruptured pheochromocytoma treated by laparoscopic adrenalectomy

No	報告者 (年)	年齢	性別	BMI	患側	出血形式	破裂時腫瘍径	手術前腫瘍径	到達法	待機期間
1	Maruyama ら (2008)	58	男	25.4	左	後腹膜出血	90 mm	30 mm	経腹膜	91日間
2	Hanna ら (2011)	38	男	記載なし	左	腹腔内出血	記載なし	40 mm	後腹膜	約5カ月間
3	Our case	46	男	21.1	左	腫瘍内出血	57 mm	45 mm	後腹膜	58日間

べうの限りでは腹腔鏡下手術を行ったものは自験例が3例目である^{21,22)} (Table 3).

患側はすべて左で、出血形式は様々であった。到達法は経腹膜2例、後腹膜1例だった。待機期間は2～5カ月で様々であったが、いずれの症例もCTで血腫の縮小と周囲脂肪織の炎症所見改善を確認後、待機手術が行われていた。

2008年の泌尿器科手術ガイドライン²³⁾によれば比較的小さな褐色細胞腫に対する腹腔鏡下副腎摘除術は経験を積んだ術者が行えば解放手術に比べ低侵襲であり安全性に問題はないとされている。加えて近年では腫瘍径に関して比較的大きな褐色細胞腫に対しても遜色ない手術成績が報告されるようになってきており、腫瘍径の与える影響は少ない可能性が示唆された^{24,25)}。

以上のことから褐色細胞腫の腹腔鏡下手術の成否を左右するのは腫瘍径より腫瘍周囲の癒着や浸潤であるとする報告も認められる²⁶⁾。さらに褐色細胞腫ではCO₂による腹腔内圧の上昇や腫瘍への直接的操作で血中のカテコラミン濃度が10倍以上に上昇するとされ、高CO₂血症や呼吸性アシドーシスも術中の高血圧を惹起すると言われている²⁷⁾。

しかしながら褐色細胞腫自然破裂に関しては破裂後はカテコラミン産生が低下している²⁰⁾ことから癒着剥離による刺激やそれに伴う手術時間の延長を加味しても手術侵襲による術中の血圧変動は少ないと考えられ、術前の適切な治療により循環動態が安定し、CTで血腫の縮小と腫瘍周囲の炎症所見の改善を認めれば、褐色細胞腫自然破裂であっても腹腔鏡下手術が可能であると思われる。

結 語

腹腔鏡下副腎摘除術を施行しえた褐色細胞腫自然破裂の1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

本症例は第218回日本泌尿器科学会関西地方会にて報告した。

謝 辞

本症例発表において病理診断いただいた大阪警察病院病理診断科、城光寺龍先生・辻本正彦先生に深謝いたします。

文 献

- 1) Habib M, Tarazi I and Batta M: Arterial embolization for ruptured adrenal pheochromocytoma. *Curr Oncol* **17**: 65-70, 2010
- 2) Müssig K, Horger M, Häring HU, et al.: Spontaneous rupture of malignant adrenal pheochromocytoma. *Emerg Med J* **25**: 242, 2008
- 3) Okutur K, Küçükler K, Öztekin E, et al.: A rare cause of acute abdomen: ruptured adrenal pheochromocytoma. *Turk J Gastroenterol* **21**: 467-469, 2010
- 4) Peng CZ, Chen JD, How CK, et al.: Catecholamine crisis due to spontaneous ruptured adrenal pheochromocytoma. *J Cardiovasc Med* **12**: 518-519, 2011
- 5) Hanna JS, Spencer PJ, Savopoulou C, et al.: Spontaneous adrenal pheochromocytoma rupture complicated by intraperitoneal hemorrhage and shock. *World J Emerg Surg* **15**: 27, 2011
- 6) 加藤健一, 柳下正樹, 清水多恵子, ほか: 糖尿病として経過し、急性腹症として発症した破裂性副腎褐色細胞腫の1例. *ホルモンと臨* **30**: 238-241, 1982
- 7) 瀬尾喜久雄, 加藤博巳, 近藤宗康, ほか: ショック状態で来院した破裂性副腎褐色細胞腫の1例. *救急医* **13**: 119-123, 1989
- 8) 野口純男, 穂坂正彦, 竹林茂生: 後腹膜に血腫を形成した褐色細胞腫. *臨泌* **48**: 257-258, 1994
- 9) 和田幸弘, 八木 宏, 米田達明, ほか: 後腹膜血腫を契機に発見された副腎褐色細胞腫の1例. *西日泌尿* **59**: 552-554, 1997
- 10) 伊藤敬一, 長田浩彦, 宮原 誠, ほか: 副腎褐色細胞腫からの後腹膜大量出血に対し、塞栓術による止血が有効であった1例. *泌尿紀要* **43**: 571-575, 1997
- 11) 上床典康, 田岡佳典, 車 英俊, ほか: 保存的に経過観察を行った褐色細胞腫自然破裂. *臨泌* **52**: 411-413, 1998
- 12) 伊藤早苗, 佐藤勝彦, 加藤法喜, ほか: 褐色細胞腫に併発したカテコラミン心筋症の1例. *CIRC FRONTI* **5**: 56-59, 2001
- 13) 前川信也, 前川正信, 牛田 博, ほか: 巨大な出血性嚢胞を伴った褐色細胞腫. *臨泌* **55**: 667-669, 2001
- 14) Orikasa K, Namima T, Ohnuma T, et al.: Spontaneous rupture of adrenal pheochromocytoma with capsular invasion. *Int J Urol* **11**: 1013-1015, 2004
- 15) Takeshita T, Takeshita K, Tagawa Y, et al.: Ruptured pheochromocytoma presenting with acute abdomen and pulmonary edema. *Intern Med* **45**: 933-934,

- 2006
- 16) 小尾竜正, 方波見卓行, 加藤浩之, ほか: 腫瘍内出血によるクリーゼに塞栓術が奏功した褐色細胞腫の1例. 日内分泌会誌 **83**: 165-167, 2007
- 17) 三村裕次, 田辺智明, 関口幸男, ほか: 副腎褐色細胞腫自然破裂により多臓器不全をきたした1例. 信州医誌 **55**: 191-198, 2007
- 18) 佐藤哲生, 矢沢正信, 原田勝弘, ほか: 血中, 尿中カテコラミン増加を認めずかつ無症候性の覆面型両側性褐色細胞腫. 総合臨 **60**: 635-637, 2011
- 19) 中田 桂, 清水裕次, 長田久人, ほか: ¹³¹I-MIBG シンチにて診断された無症候性褐色細胞腫自然破裂の1例. 日画像医誌 **29**: 125-129, 2012
- 20) Jones DJ and Durning P: Pheochromocytoma presenting as an acute abdomen: report of two cases. Br Med J **291**: 1267-1268, 1985
- 21) Maruyama M, Sato H, Yagame M, et al.: Spontaneous rupture of pheochromocytoma and its clinical features: a case report. Tokai J Exp Clin Med **33**: 110-115, 2008
- 22) Hanna JS, Spencer PJ, Savopoulou C, et al.: Spontaneous adrenal pheochromocytoma rupture complicated by intraperitoneal hemorrhage and shock. World J Emerg Surg **6**: 27, 2011
- 23) 日本 Endourology・ESWL 学会: 副腎腫瘍に対する腹腔鏡下副腎摘除術ガイドライン. Jpn J Endourol ESWL **21**: 4-14, 2008
- 24) Indupur RR, Nerli RB, Reddy MN, et al.: Laparoscopic adrenalectomy for large pheochromocytoma. BJU Int **100**: 1126-1129, 2007
- 25) Wilhelm SM, Prinz RA, Barbu AM, et al.: Analysis of large versus small pheochromocytomas: operative approaches and patient outcomes. Surgery **140**: 553-560, 2006
- 26) Shen WT, Sturgeon C, Clark OH, et al.: Should pheochromocytoma size influence surgical approach?: a comparison of 90 malignant and 60 benign pheochromocytomas. Surgery **136**: 1129-1137, 2004
- 27) Flávio Rocha M, Faramarzi-Roques R, Tauzin-Fin P, et al.: Laparoscopic surgery for pheochromocytoma. Eur Urol **45**: 226-232, 2004

(Received on March 18, 2013)
(Accepted on August 14, 2013)