

副腎骨髄脂肪腫の1例

国立大阪病院泌尿器科 (医長: 高羽 津)

三宅 修, 細見 昌弘, 松宮 清美

岡 聖次, 高羽 津

国立大阪病院病理 (主任: 倉田明彦)

倉 田 明 彦

健康保険鳴門病院 (院長: 秦原洋一)

淡 河 洋 一, 上 間 健 造

A CASE OF ADRENAL MYEOLIPOMA

Osamu MIYAKE, Masahiro HOSOMI, Kiyomi MATSUMIYA,
Toshitsugu OKA and Minato TAKAHA*From the Department of Urology, Osaka National Hospital*

Akihiko KURATA

From the Department of Pathology, Osaka National Hospital

Yoichi AGA and Kenzo UEMA

From the Department of Urology, Health Insurance Naruto Hospital

A case of adrenal myelolipoma is presented. The patient was a 61-year-old woman who complained of lumbago this time. A tumor of the left adrenal gland, however, had been found by computed tomography 4 years earlier. Judging from the CT, the size of this tumor had not changed at all, although the density of the mass on admission had reduced, compared with that of 4 years earlier. Laboratory examinations of adrenal function was normal. Left adrenalectomy was performed. Histologically, this tumor consisted of adipose and some hematopoietic tissue. We reviewed 43 cases of adrenal myelolipoma resected surgically in Japan.

(Acta Urol. Jpn. 35: 1373-1377, 1989)

Key words: Myelolipoma, Adrenal gland

緒 言

副腎骨髄脂肪腫は脂肪組織と造血組織から成る臨床的には比較的稀な良性腫瘍であるが近年画像診断の進歩とともにその報告例も増えつつある。今回われわれは本症の1例を経験したので報告する。

症 例

患者: 61歳, 女性

主訴: 腰痛

既往歴: 1967年急性腎盂腎炎, 1971年髄膜炎, 1972年大腸ポリープのためポリペクトミー, 1973年胆嚢結石のため胆嚢摘出術を施行。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1983年胸部不快感出現し, 某院受診し, 異常なしといわれたが症状持続するため鳴門病院を受診した。この時腹部 CT 検査で左副腎腫瘍を指摘されたが良性腫瘍として経過観察されていた。その後, 1987年9月腰痛出現し, 再度鳴門病院にて CT 検査を施行したところ4年前と腫瘍内部の性状が著しく異なっており悪性腫瘍も懸念され手術目的にて当科に紹介され入院となった。

入院時現症: 身長 159 cm, 体重 68 kg, 胸部理学的所見異常なし。血圧 140/88 mmHg, 腹部は平坦軟で腫瘍を触知せず。肝, 脾, 腎も触知しない。

検血, 血液生化学検査では異常を認めず。

末梢血ホルモン検査: PRA 0.7 ng/ml/hr, s-aldo-sterone 16 pg/ml, angiotensin I 44 pg/ml, angio-

tensin II 6 pg/ml, ACTH <10 pg/ml, s-cortisol 5.6 pg/ml, DOC 0.046 ng/ml, corticosterone 1.7 ng/ml, s-epinephrine <0.01 ng/ml, s-norepinephrine 0.07 ng/ml, u-metanephrine 0.12 mg/day, u-normetanephrine 0.2 mg/day, u-VMA 4.4 mg/day, u-17KS 5.1 mg/day, u-17OHCS 3.3 mg/day, いずれも正常範囲内にあった。

腹部超音波検査：左腎上部に全体に hypoechoic な腫瘍を認める (Fig. 1)。

KUB：左腎上部に直径 6 cm の腫瘍陰影を認める (Fig. 2 左)。

IVP：左腎上部の腫瘍とこれによる左腎全体の下方への著明な偏位を認める (Fig. 2 右)。

腹部単純 CT：1983年時に左腎上部に辺縁平滑、境界明瞭ではあるが内部の density が不均一な腫瘍を認めている (Fig. 3 上)。一方、入院直前 (1987年) の CT (Fig. 3 下) では大きさに変化はないが内部の性状が一部隔壁状の部分を除き、ほぼ全体に low density で4年前とは著しく異なっていた。なおこの low density area は contrast medium による

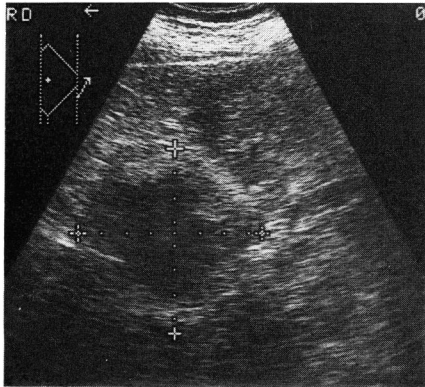


Fig. 1. Ultrasonogram shows left suprarenal hypoechoic mass.

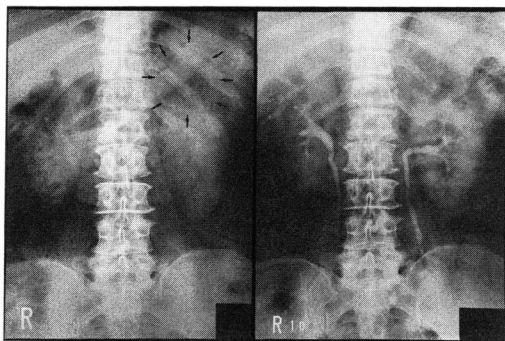


Fig. 2. KUB and IVP reveals radiolucent mass displacing the left kidney inferiorly.

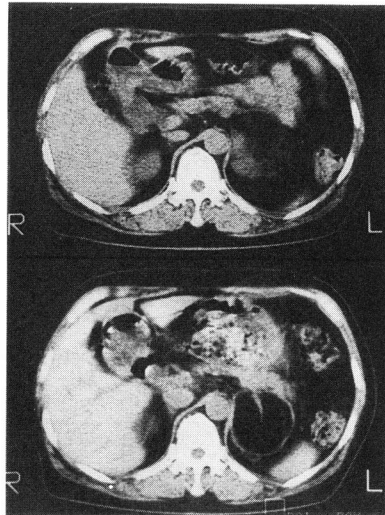


Fig. 3. CT in 1983 shows inhomogeneous mass consisted of fatty density and higher density areas (upper). CT in 1987 demonstrates almost homogeneous mass of the same size with the density of fat tissue except one portion like a septum (lower).

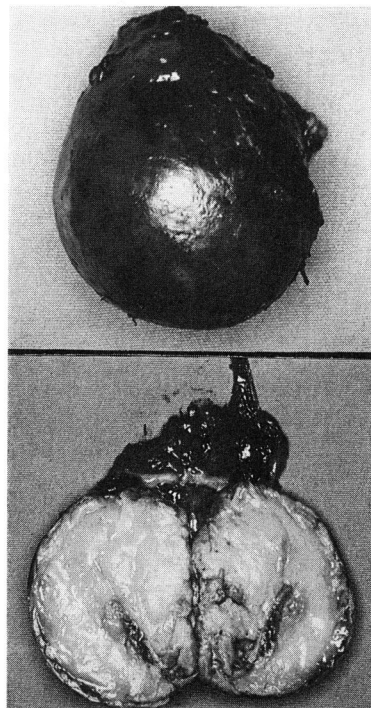


Fig. 4. Gross appearance: the tumor is covered with smooth and brown-red capsule (upper). Cut surface reveals encapsulated tumor that seems to contain fatty area and a little adrenal parenchyma (lower).

enhancement が認められなかった。

左中副腎動脈造影: 左中副腎動脈は腫瘤により下方へ著しく圧排伸展されており腫瘍は hypovascular で, tumor stain や pooling 像などの悪性腫瘍を積極的に疑わせる所見は認められなかった。

以上の所見より左副腎腫瘍と診断し1987年12月13日全麻下にて左副腎腫瘍摘出術を施行した。第10肋骨切除を伴う腰部斜切開で腹膜外的に後腹膜腔に達したが, 腫瘍は脂肪被膜を介して下面が腎上部の被膜と, 側面および後面が腹膜, 腸腰筋筋膜と強固に癒着しており剥離は難渋し術中出血量は520gであった。術中は悪性腫瘍が強く疑われたが, 摘除後は周囲組織の損傷や腫瘍の遺残は認められなかった。

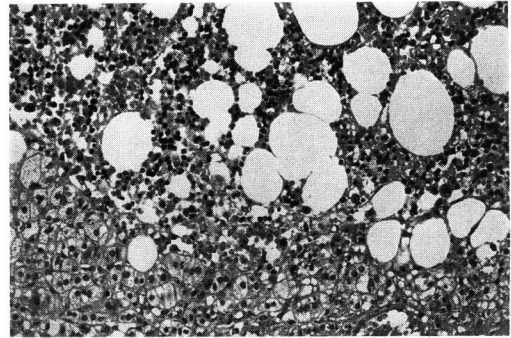


Fig. 5. Microphotograph shows the tumor almost consisted of necrotic and fatty area with a little adrenal cortex and hematopoietic tissue.

Table 1. Adrenal myelolipoma resected surgically in Japan

No.	報告年度	報告者	年齢	性	患側	症 状	重量(g)
1	1960	野 内	55	男	左	左上腹部腫瘍	500
2	1975	白 坂	51	女	右	右側腹部腫瘍	1200
3	1978	当 真	56	女	左	左上腹部腫瘍	1930
4	1979	塚 口	41	男	右	?	1700
5	1981	Ishikawa	20	男	右	心窩部痛, 右下腹部痛	150
6	1982	金 地	36	男	右	右季肋部痛	1230
7	1982	櫻 井	51	男	右	偶 然	430
8	1983	新 井	56	男	左	肉眼的血尿, 腰痛	387
9	1983	飯 塚	57	男	左	左上腹部腫瘍	?
10	1983	佐 藤	59	男	右	偶 然	50
11	1983	"	33	男	右	偶 然	10
12	1983	中 村	56	女	右	上腹部痛	?
13	1983	渡 辺	51	男	右	偶 然	480
14	1984	大 友	52	女	右	偶 然	20
15	1984	上 領	45	男	両	肉眼的血尿, 腹部腫瘍	左 1219 右 1950
16	1985	田 中	50	男	右	右側腹部腫瘍	800
17	1985	金	37	女	右	偶 然	16
18	1985	舟 田 ⁴⁾	63	男	右	背部痛	690
19	1985	宇 井 ⁵⁾	52	女	左	偶 然	260
20	1985	Fujita ⁶⁾	30	女	左	体重増加, 易疲労感	50
21	1986	藤 本	51	男	右	偶 然	580
22	1986	中 野 ⁷⁾	54	男	右	右季肋部痛, 腹部膨満感	770
23	1986	布 施 ⁸⁾	60	女	右	右季肋部痛	320
24	1986	村 木 ⁹⁾	33	男	右	偶 然	270
25	1986	道 免 ¹⁰⁾	64	女	右	偶 然	110
26	1986	大 沢 ¹¹⁾	47	女	右	偶 然	?
27	1986	森 山	43	男	左	偶 然	620
28	1986	雨 宮	62	女	右	右側腹部痛	420
29	1987	鴨 下 ¹²⁾	47	男	右	偶 然	195
30	1987	田 中 ¹³⁾	55	男	右	?	?
31	1987	松 井 ¹⁴⁾	56	女	右	偶 然	130
32	1987	坂 本	67	男	左	偶 然	60
33	1987	斎 藤 ¹⁵⁾	53	男	右	夜間尿, 残尿感	60
34	1988	古 谷 ¹⁶⁾	37	男	左	左側腹部痛, 体重減少	170
35	1988	大 森 ³⁾	76	男	右	偶 然	56
36	1988	"	49	男	右	偶 然	47
37	1988	武 田 ¹⁷⁾	30	女	右	全身倦怠感	100
38	1988	武 田 ¹⁸⁾	56	女	左	偶 然	35
39	1988	川 嶋 ¹⁹⁾	50	男	右	偶 然	72
40	1988	江 口 ²⁰⁾	45	男	右	右上腹部痛	?
41	1988	壽 美	47	女	右	右側腹部痛	225
42	1988	" ²¹⁾	59	男	右	偶 然	410
43	1988	自験例	61	女	左	腰 痛	120

摘出標本：大きさ $7 \times 6.5 \times 5$ cm, 重さ 120 g で表面平滑で赤褐色であった (Fig. 4 上). 剖面では、腫瘍は厚い線維性被膜に覆われ内部は黄色脂肪組織様で一部泥状の内容物も含んでいた。腫瘍底部には本来の副腎組織と思われる部分が薄く広がっており、一部隔壁状に内腔に突出している部分も見られた (Fig. 4 下).

病理組織学的所見 (Fig. 5)：脂肪細胞の間を埋めつくすように細胞成分に富んだ造血組織の増生が見られ、正常な副腎皮質細胞も一部に認められたため、自験例は左副腎より発生した骨髓脂肪腫と診断された。

考 察

副腎骨髓脂肪腫は脂肪組織と造血組織の混在する比較的稀な良性腫瘍とされてきた。自覚症状に乏しいこともありこれまでは剖検時に偶然発見されることがほとんどで、その頻度は $0.08 \sim 0.2\%$ ^{1,2)}といわれている。近年画像診断技術の進歩に伴い生存中に発見され、外科的に切除される症例も増えてきている。

現在も続々と報告されつつあるが、本邦で生存中に外科的に切除された症例はわれわれが調べた限りでは最近の大森ら³⁾の24例の報告以外の18例⁴⁻²¹⁾と自験例を加え43例である (Table 1)。欧米では59例が報告されている²²⁾。年齢は本邦症例が20歳から76歳 (平均51歳) で欧米報告例と同じく40代、50代に多い。性別については欧米では男女ほぼ同数なのに対し本邦では男性27名、女性16名と男性優位である。患側は欧米例で左右差はないが、本邦例は右31例、左11例、両側1例と右に多い。症状については腫瘤触知、腹部・側腹部・腰部などの疼痛が主であるが、いわゆる incidentaloma が欧米では全体の25%²²⁾、本邦では41例中20例 (約50%) を占めている。重量は本邦で $10 \sim 1,950$ g (平均 460 g)、欧米では $25 \sim 5,500$ g までの報告があり、500 g を越えるものは腫瘤として触知されることが多い。

本症の画像診断上の特徴は超音波検査にて腫瘤内部が hyperechoic pattern を呈すること、KUB や IVP において腎上部の腫瘤陰影とこれによる腎の下方への圧排像が見られること、さらに腹部 CT にて、内部 density が脂肪、造血組織、出血巣の混在のため inhomogeneous で辺縁平滑、境界明瞭な腫瘤として認められること、血管造影で hypovascular な腫瘍として認められることがあげられる。しかし腫瘍内部は出血、壊死、石灰化によって修飾されることが多く、後腹膜腔原発の lipoma, liposarcoma や angiolipoma などとの鑑別が困難なこともある。自験

例では、4年前と入院直前の CT を比較し腫瘍のサイズにはほとんど変化がないものの直径が約 6 cm と比較的大きいこと、CT にて腫瘍内部の density が著しく変化しており、腫瘍内部がこの間、広範囲に壊死をきたしたと考えられることの2つの理由から悪性腫瘍も疑われ、外科的に腫瘍を摘出した。

病理組織学的には今回摘出した腫瘍は骨髓脂肪腫という良性腫瘍であったがその内部は脂肪組織が散在する壊死組織がほとんどであった。このことは本症が良性腫瘍であるにもかかわらず広範な内部壊死をきたするという点で興味深い。

一方、近年本症の確定診断のために 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。しかしこの診断方法に対する警告として aspiration biopsy で adenocarcinoma の組織を得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²³⁾も報告されており、悪性の場合の腫瘍細胞の播種の点からもその適応には充分慎重でなくてはならない。一方で Mitnick ら²⁴⁾のように CT 検査で腫瘤の辺縁が平滑で境界が明瞭かつサイズが 5 cm 以下の場合に 3, 6, 12 カ月後にそれぞれ再検査を行って no growth と認めれば良性腫瘍として経過観察するという方針も incidental に発見された高齢者の症例には良いのではないかと思われる。

本症の発生原因については、骨髓細胞の胎児期遺残、骨髓細胞の塞栓、副腎皮質細胞の化生などがあげられているが最も有力な説は皮質細胞の化生である。その原因についても諸説があり、一つは、本症に Addison 病、Cushing 病、21-hydroxylase 欠損症²⁵⁾、17-hydroxylase 欠損症²⁶⁾を合併した症例があることから ACTH の過剰分泌が示唆されている。一方、Olsson ら²⁷⁾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。いずれにしても明らかな発生原因は今のところ不明である。

結 語

4年前に CT 検査で発見され今回副腎腫瘍摘出術を施行した副腎骨髓脂肪腫の1例を経験したので報告し、文献的考察を加えた。

本論文の要旨は第123回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

文 献

- 1) McDonnell WV: Myelolipoma of adrenal.

- Arch Pathol **61**: 407-415, 1956
- 2) Olsson CA, Krane RJ, Klugo RC and Selicowitz SM: Adrenal myelolipoma. *Surgery* **73**: 665-670, 1973
 - 3) 大森孝平, 兪 明德, 堀井泰樹, 真田俊吾, 松田公志, 高橋陽一, 佐々木正道: 副腎 Myelolipoma の 2 例. 泌尿紀要 **34**: 141-146, 1988
 - 4) 舟田 隆, 渡辺哲弥, 増田 浩, 石塚文雄, 橋本守男, 中村哲夫, 山口貞祐, 知念哲三, 平川賢, 三浦正太, 畠山重春: 副腎骨髓脂肪腫の 1 例. 日臨外医会誌 **46**: 48, 1985
 - 5) 宇井政彦, 宮島 透, 渡辺 茂, 布施一郎, 小田弘隆, 金子兼三, 柴田 昭: 糖尿病, 高血圧, hypersplenism を合併した副腎 Myelolipoma の 1 例. 新潟医会誌 **49**: 145, 1985
 - 6) Fujita Y, Amemiya H, Shibuya A, Murata K, Uchida H, Yajima Y and Okabe H: Adrenal calcification and myelolipoma associated with Cushing's syndrome. *Jikeikai Med J* **32**: 495-501, 1985
 - 7) 中野 功, 佐野 博, 片田直幸, 西村大作, 小山泰生, 大野秀樹, 野場ゆかり, 加藤活大, 妹尾知己, 武市政之: 副腎骨髓脂肪腫の 1 手術例. 日内会誌 **75**: 598-599, 1986
 - 8) 布施正博, 菅野茂男, 水吉秀男, 石井耕司, 山室渡, 菅野憲一郎, 古河一男, 安部井徹, 海老原善郎: Adrenal Myelolipoma の 1 例. 東邦医会誌 **32**: 672-676, 1986
 - 9) 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
 - 10) 道免和文, 鍵山 裕, 高木宏治, 福岡道雄, 後藤郁郎, 岡部正之, 中村 照, 牛島正和: 超音波検査が有用であった副腎骨髓脂肪腫の 1 例. 日超医論文集 **287-288**, 1986
 - 11) 大沢昌平, 有里仁志, 斎木 功, 松岡伸一, 川俣孝, 越野 勇, 奥 哲男, 新田一雄, 国枝保幸, 樋口晶文, 鈴木知勝: 副腎 Myelolipoma の 1 例. 北外誌 **31**: 307-308, 1986
 - 12) 鴨下孝志, 沓沢菊雄, 坂本 龍, 斎藤 功, 児玉武久, 中村浩一, 五十嵐 勉: 副腎原発骨髓脂肪腫の 1 例. 日超医論文集 **943-944**, 1987
 - 13) 田中宏昭, 佐藤守男, 塩山靖和, 大門幹子, 川原公子, 白井信太郎, 岸 和史, 津田正洋, 吉川明輝, 諏訪和宏, 寺田正樹, 前田美保, 川端 衛, 山田龍作, 南 浩二, 永井祐吾, 勝見正治: 副腎原発 Myelolipoma の 1 例. 日医放線会誌 **47**: 867, 1987
 - 14) 松井遵一郎, 矢野直樹, 猪狩咲子, 山崎美一: 副腎部に発生した骨髓脂肪腫の 2 症例. 日超医論文集 **945-946**, 1987
 - 15) 斎藤史郎, 比嘉 功, 小山雄三, 秦野 直, 早川正道, 大澤 炯: 副腎骨髓脂肪腫. 臨泌 **41**: 809-811, 1987
 - 16) 古谷雄三, 布施秀樹, 石井弘之, 角谷秀典, 島崎淳, 松寄 理: 副腎骨髓脂肪腫. 臨泌 **42**: 63-65, 1988
 - 17) 武田 肇, 菅本裕美, 小田剛士, 松本充司: 副腎原発骨髓脂肪腫の 1 例. 西日泌尿 **50**: 683-687, 1988
 - 18) 武田繁雄, 小林敦勇, 竹中生昌: 副腎 Myelolipoma の 1 例. 日泌尿会誌 **79**: 355, 1988
 - 19) 川嶋秀紀, 坂本 亘, 西島高明, 花田正人, 富野郁子, 前倉亮二, 中村仁信: 副腎 Myelolipoma の 1 例. 日泌尿会誌 **79**: 375, 1988
 - 20) 江口孝行, 戸田 央, 丸川忠憲, 安東千代, 水溜耕吉, 門田 尚, 清水信義: 副腎 Myelolipoma の 1 手術例. 外科診療 **30**: 700-703, 1988
 - 21) 壽美周平, 國保昌紀, 石橋克夫, 山内民男, 鷺塚誠, 河合恒雄: 副腎骨髓脂肪腫の 2 例. 泌尿紀要 **34**: 855-861, 1988
 - 22) Dieckmann KP, Hamm B, Pickartz H, Jonas D and Bauer HW: Adrenal Myelolipoma: clinical, radiologic, and histologic features. *Urology* **29**: 1-8, 1987
 - 23) 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
 - 24) Mitnick JS, Bosniak MA, Megibow AJ and Naidich DP: Non-functioning adrenal adenomas discovered incidentally on computed tomography. *Radiology* **148**: 495-499, 1983
 - 25) 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
 - 26) Condom E, Villabona CM, Gomez JM and Carrera M: Adrenal myelolipoma in a woman with congenital 17-hydroxylase deficiency. *Arch Pathol Lab Med* **109**: 1116-1117, 1985

(1988年10月8日受付)