

副腎 myelolipoma

自験例 1 例と外科的切除例 79 例に関する文献的考察

奈良県立医科大学第1内科学教室

中 島 靖 夫, 野 中 秀 郎, 金 内 雅 夫
石 川 兵 衛

奈良県立医科大学泌尿器科学教室

岩 井 哲 郎, 平 尾 佳 彦, 岡 島 英五郎

奈良県立医科大学第1病理学教室

榎 木 登, 青 笹 克 之

A CASE REPORT OF ADRENAL MYELOLIPOMA

YASUO NAKASHIMA, HIDEO NONAKA, MASAO KANAUCHI and HYOE ISHIKAWA

The First Department of Internal Medicine, Nara Medical University

AKIO IWAI, YOSHIHIKO HIRAO and EIGORO OKAJIMA

Department of Urology, Nara Medical University

NOBORU ENOKI and KATSUYUKI AOZASA

The First Department of Pathology, Nara Medical University

Received July 20, 1989

Summary: The patient was a 44-year old woman, who had undergone a medical examination. US showed accidentally a gall bladder stone and a high echogenic mass between the right kidney and the liver. There were no abnormal findings in the laboratory data, including hormone assays. The mass showed fat density with partial calcification on CT scan and hypovascularity on angiogram. The image of the area was not altered by enhancement. NMR revealed a round homogenous tumor surrounded by a smooth capsule. The mass was diagnosed as a benign non-functioning right adrenal tumor. At surgery, a 4.0×3.9×2.9 cm, 90 g, encapsulated tumor was removed. Pathological findings confirmed the diagnosis of adrenal myelolipoma, composed of myeloid and fatty elements.

Myelolipoma of the adrenal gland is a rare non-functioning benign tumor consisting of fat cells and bone marrow element. To our knowledge, only 87 resected cases of adrenal myelolipoma have been reported in the world including 19 cases in our country.

Index Terms

adrenal tumor, myelolipoma

はじめに

副腎の myelolipoma は、きわめて稀に見られる良性腫瘍であり、従前の報告例はほとんどが剖検時に発見されたものである。近年、超音波検査・CT 検査・NMR 検査などの画像診断法が普及するに伴い、他の疾患の検査中に偶然発見される機会が多くなった。著者らも、人間ドックの腹部超音波検査によって偶発的に発見され、外科的に切除しえた副腎 myelolipoma 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：44 歳，女性，公務員。
主訴：なし。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：31 歳で左膝蓋骨骨折，42 歳で胆石を指摘。

現病歴：昭和 59 年 8 月に人間ドックの腹部超音波検査で胆石を指摘されたが、症状がないため放置していた。昭和 60 年 8 月，二度目の人間ドックにおける腹部超音波検査で，胆石とともに右腎上部腫瘍を指摘され，同年 10 月に精査を目的として当科に入院した。

入院時現症：身長 157 cm，体重 60 kg (過体重)。体温 36.0℃。血圧 114/84 mmHg。脈拍 64/分，整。結膜は貧血・黄疸なし。甲状腺腫を認めない。表在リンパ節を触知されない。腹部は平坦・軟，肝・脾・腎・腫瘍は触知されず，圧痛もない。下腿には浮腫を認めない。神経学的に異常所見はない。満月様顔貌・赤色皮膚線条・多毛・外陰部異常など，副腎皮質腫瘍を示唆する所見は認めら

Table 1. Laboratory findings on admission

Urinalysis		Testosterone	0.5 ng/ml
protein	(-)	ACTH	<20.0 pg/ml
sugar	(-)	Progesterone	0.5 ng/ml
blood	(-)	E ₂	38 pg/ml
CBC		E ₃	<10.0 pg/ml
WBC	3,700/mm ³	A	<0.01 ng/ml
RBC	437×10 ⁴ /mm ³	NA	0.36 ng/ml
Hgb	12.8 g/dl	Calcitonin	<25 pg/ml
Hct	38.8%	T ³	165.5 ng/dl
Platelet	17.8×10 ⁴ /mm ³	T ⁴	8.0 μg/dl
Blood chemistry		Serology	
TP	8.1 g/dl	ESR	24 mm/hr
Alb	5.1 g/dl	CRP	(-)
T. Cho	247 mg/dl	CEA	1.0 ng/ml
TG	149 mg/dl	AFP	65 ng/ml
TB	0.9 mg/dl	RA	(-)
GOT	29 IU/l	HBsAg, HBsAb	(-)
GPT	14 IU/l	Wa-R	(-)
ALP	4.7 KAU	Urinary chemistry	
BUN	10 mg/dl	PAC	1.5 ng/ml
Creatinine	1.2 mg/dl	17-KS	6.9 mg/day
UA	4.5 mg/dl	17-OHCS	4.8 mg/day
Na	140 mEq/l	17-KGS	10.6 mg/day
K	3.7 mEq/l	MN	0.07 mg/day
Cl	104 mEq/l	NMN	0.14 mg/day
Ca	9.0 mg/dl	A	14.4 μg/day
P	3.4 mg/dl	NA	169.1 μg/day
FBS	97 mg/dl	DA	1341 μg/day
PRA	1.73 ng/ml/h	VMA	3.0 mg/day
PAC	86.5 pg/ml	HVA	5.5 mg/day
Cortisol	10.8 μg/dl	5-HIAA	4.1 mg/day
11-OHCS	11.4 μg/dl		

れない。

入院時検査成績：尿所見には異常なし。末梢血に貧血や白血球増多はない。肝・腎機能および電解質にも異常はない。血沈が軽度に促進しているが、CRP は陰性で、フェリチン・CEA・AFP などの腫瘍マーカーの上昇も認められない。

内分泌学的検査：尿中ドーパミンが軽度上昇を示すのみで、その他の血中・尿中各種ホルモン測定法に異常は認められなかった (Table 1)。

画像診断：1) DIP；右腎が下方に軽度圧排され、右副腎部に一致して石灰化を伴う直径 3 cm 大の X 線透過性の高い腫瘍が認められた (Fig. 1)。2) 腹部超音波検査；辺縁が比較的明瞭な円形の腫瘍が存在する。部分的に輝度の強いエコーがあり、石灰化と脂肪成分を有する腫瘍と考えられた (Fig. 2)。3) CT；腫瘍は 3 cm 大で腹部超音波所見を裏づけた。造影剤による陰影増強は見られなかった (Fig. 3)。4) NMR；腫瘍は肝および腎と隔壁さ

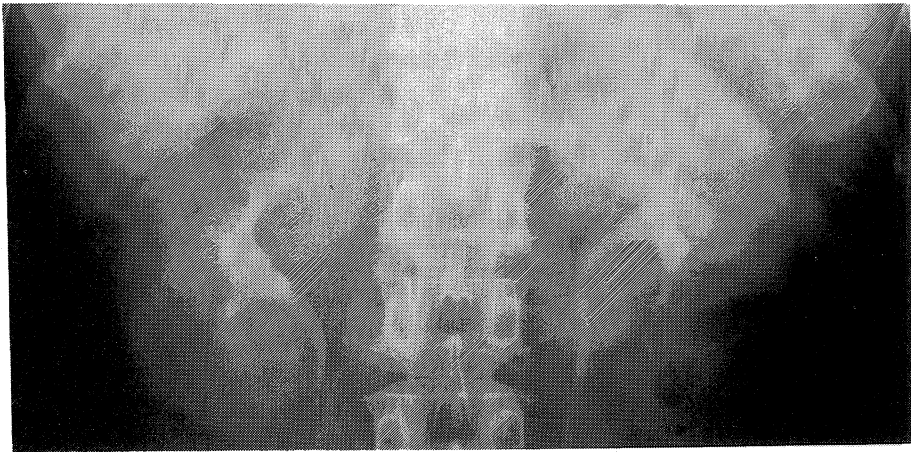


Fig. 1. DIP showing caudal displacement of right kidney secondary to suprarenal mass.

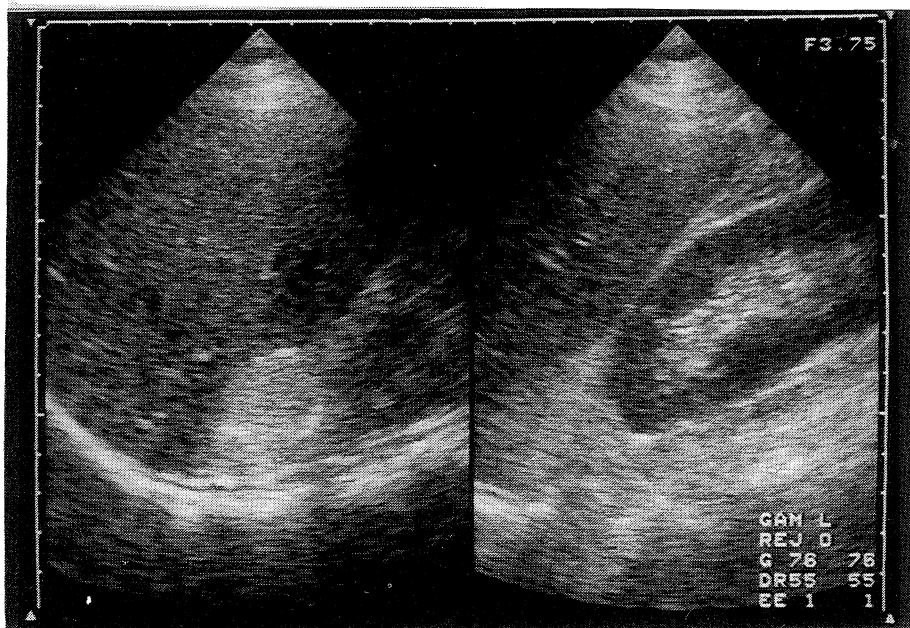


Fig. 2. Abdominal US showing a high and low echogenic mass.

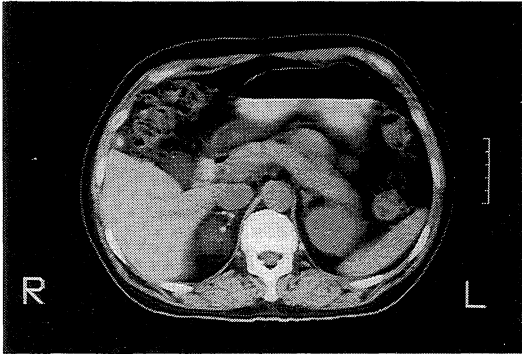


Fig. 3. CT scan of the upper abdomen showing a 3cm mass of varying density on the right.

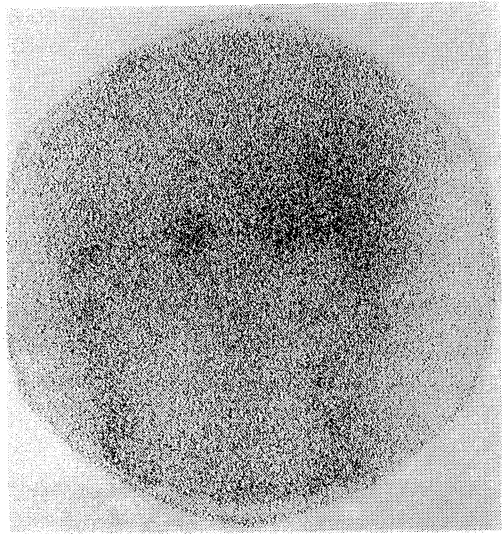


Fig. 5. Scintigram of adrenals doesn't differ from each side in ¹³¹I-iodosterol.



Fig. 4. Nuclear magnetic resonance (NMR) imaging, coronary section: sharply marginated, inhomogeneous right suprarenal mass.

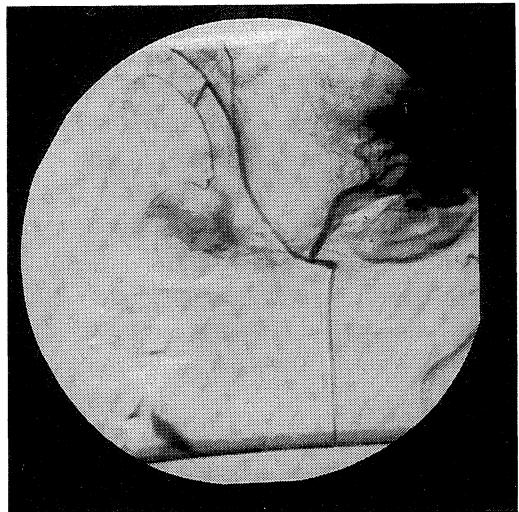


Fig. 6. DSA of adrenals showing that right superior adrenal artery and inferior adrenal artery were pushed by the hypovascular mass.

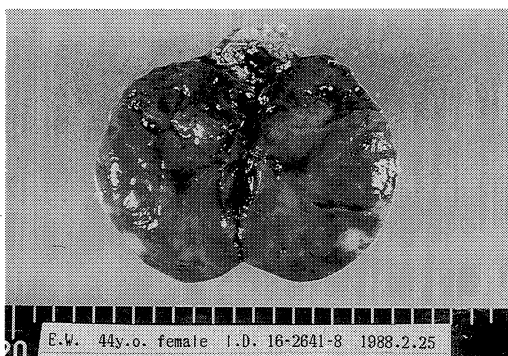


Fig. 7. Cut section of the excised adrenal tumor. Gross specimen. 4.0×3.9×2.9 cm, 90g

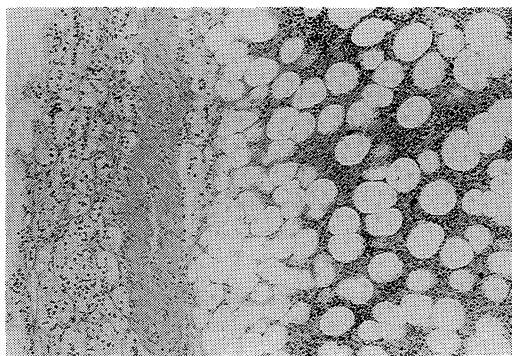


Fig. 8. Microphotograph showing the mixture of mature fat cells, bone marrow elements and the adrenal gland. (H. E. stain×100)

れており副腎由来と思われた(Fig. 4). 5) 副腎シンチグラム; ^{131}I -adosterol シンチでは左副腎の陰影は正常であり, また右副腎はやや淡く描出されており, ホルモン産生腫瘍とは考えられなかった(Fig. 5). 6) DSA; 上下副腎動脈が強く圧排され, 腫瘍へは数本の栄養血管がみられたが, 全体には乏血管域であった(Fig. 6). さらに静脈造影では, 直径3 cm 大の円形欠損像が認められたが, 同時に施行した副腎動脈採血ではコルチゾール・アルドステロンなど各種ホルモンの明かな左右差は認められなかった.

術前臨床診断: 以上の検査結果から, 術前に右副腎の myelolipoma と診断し, 1986年9月の第121回日本内科学会近畿地方会で報告した.

手術所見, 摘出腫瘍: 1988年2月25日日本学泌尿器科で腫瘍の摘出手術を行った. 右腎の上極に腫瘍が認められ, 境界明瞭で周囲への浸潤を思わせる所見はなかった. 摘出腫瘍は4.0×3.9×2.9 cm, 90 g であり, 表面平滑, 弾

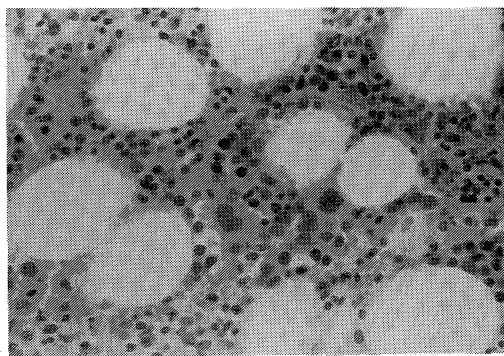


Fig. 9. Microphotograph. (H. E. stain×400)

性軟で, その剖面は黄色調と赤褐色調が混在していた(Fig. 7). 摘出腫瘍の病理組織像は, 脂肪組織と脂肪組織のあいだに骨髄組織が点在しており, 骨髄組織内には巨核球系・赤芽球系・顆粒球系の3系統の造血細胞が存在していた(Fig. 8, 9).

術後経過: 術後, 副腎機能低下の徴候はなく, 順調に経過し, 健康な社会生活を送っている.

考 察

副腎 myelolipoma は, 組織学的に造血組織と脂肪組織が混在する副腎の良性腫瘍で, 1905年に Gierke¹⁾ によって最初に報告され, 1929年に Oberling²⁾ によって命名された稀な腫瘍として注目されてきた. 本腫瘍の多くは, 剖検時に発見されたものであり, 生前に診断し得る機会にはきわめて稀とされていた.

1. 副腎 myelolipoma の頻度

本腫瘍が剖検時に発見される頻度は0.08~0.2%に過ぎないとされており^{3,4)}, 本腫瘍が生前に発見される頻度はさらに少ない. とりわけ腹部超音波検査が日常臨床に汎用される以前にはきわめて稀な疾患であった. 本腫瘍が外科的に摘出されたのは, 1957年の Dyckman⁵⁾ によるものが最初とされているが, 著者らは1922年に Hofstatter と Schnitzler⁶⁾ によって摘出された腫瘍も本腫瘍であった可能性が強いと考えている. 著者らの調査によると, 本腫瘍の既報の摘出症例は世界で87例, 本邦で19例に過ぎず, 本例が本邦における20例目にあたる.

2. 臨床症状

切除例87例のうち, 詳細が判明した79例について検討した結果, 腹痛あるいは腹部腫瘤を主訴としたものが27例と最も多く, ついで無症状が21例存在した. 無症状の多くは, 腹部超音波検査などによって偶然に発見された症例であり, そのほとんどが小さな腫瘍であった. そ

その他には血尿を呈して発見された症例があった。

3. 性, 年齢, 発生部位, 合併症

性: 著者らが調査した 79 例のうちわけでは, 男性 43 例, 女性 36 例で, 本腫瘍はやや男性に多く傾向がみられた。年齢: 全症例の平均年齢は 51.2 歳で, 50 歳代が 28 例 (35.4%) を占めていた。発生部位: 右副腎が 41 例, 左副腎が 35 例, 両側が 2 例, 異所性が 1 例であり, 明かな左右差はなかった。腫瘍の重量は小さいもので 10 g, 大きいもので 5,900 g, 平均は 924 g であった。

合併症: 26 例が肥満, 22 例が高血圧症, 8 例が糖尿病を合併しており, 自験例は胆石を合併し, 軽度の過体重を呈していた。

4. 原因

副腎 myelolipoma の発生由来については, 従来から①胎生期の骨髄組織遺残, ②骨髄組織の塞栓, ③副腎皮質細胞の metaplasia の 3 仮説⁷⁾⁹⁾が唱えられてきたが, 現在では③の仮説が最も有力とされている⁹⁾。腫瘍発生の誘因として, Selye ら¹⁰⁾はストレスによる corticotropin の過剰産生による刺激をあげており, Olsson ら¹¹⁾は本腫瘍は高血圧症や肥満に合併する場合が多く高血圧や肥満は組織壊死を惹起し易いことから, 壊死物質が metaplasia を起こす誘因であると述べている。

5. 診断

本腫瘍の診断は主として画像診断によってなされる。画像診断における特徴として, 腎盂造影では X 線透過性の高い腫瘍として認められることが多く¹²⁾, 一部症例では石灰化を伴うこともある。副腎動脈造影や DSA 検査では, 無血流域または腫瘍血管の増生や濃染像を認めない乏血流域の所見がみられる。しかし動脈短絡が認められた例もある¹³⁾。

副腎静脈造影は腫瘍発生臓器を確認するために実施されるが, 同時に内分泌機能の有無と程度を決定するための血液採取にもちいられる¹⁴⁾。腹部超音波機能検査における特徴は, 腫瘍内部がほぼ均一の高エコー像を示し, 周囲との境界が明瞭である点である。腹部 CT では, 辺縁が平滑, 内部は低吸収域で造影剤による増強効果の少ない像が得られる。また副腎シンチグラムは過剰な取り込みがみられず, NMR で腫瘍が周囲と隔絶されていることが重要である。

本腫瘍は通常, 血液および尿の生化学検査や内分泌学検査により異常を示さない無機能性の腫瘍であるが, 時には内分泌異常を呈する場合があるので, 診断には十分な注意が必要といえる。

6. 鑑別診断

腎あるいは副腎の腫瘍のうち, 脂肪成分を有するもの

として lipoma, liposarcoma, renal angiomyolipoma, Wilms' tumor などがある。このうち, liposarcoma では, CT で内部不均一, 辺縁不整で周囲浸潤を示す像が認められ, さらに造影剤による増強効果を示す場合が多い¹⁵⁾。しかし分化型は画像診断上鑑別が困難である¹⁶⁾。renal angiomyolipoma や Wilms' tumor の診断には腎血管造影が有用である¹⁷⁾。近年, 超音波鑑別下吸引生検術¹⁸⁾が施行されるようになり, 外科的切除を必要としなかった症例が報告されている¹⁹⁾²⁰⁾。しかし本法は腫瘍が悪性の場合には腫瘍細胞を散布する危険性があり, さらに出血・ショックに対する危険性もあるのでこの点に対する検討及び対策が必要である。

画像診断の著しい発展とともに, 今後 myelolipoma に限らず無症候性の小病変の早期発見が期待される。

ま と め

人間ドックの腹部超音波検査によって偶然に発見された無症候性の副腎腫瘍で, 画像診断を中心とした臨床的検査によって副腎 myelolipoma と診断し, 外科的に切除し得た症例を経験したので文献的考察を加えて報告した。従来, 本腫瘍が生前に発見され, 切除されることはきわめて稀であったが, 近年の画像診断の普及に伴い今後増加するものと推測されるが, 画像診断に際しては機能の有無, 悪性度などに対する十分な注意が必要である。

本論文の要旨は第 121 回日本内科学会近畿地方会 (1986 年 9 月) において発表した。

文 献

- 1) Gierke, E.: Uber Knochenmarksgewebe in der Nebenniere. Beitr. Path. Anat. (Suppl)7: 311-312, 1905.
- 2) Oberling, C.: Les formations myelolipomateuses. Bull. Assoc. Franc. Cancer (Paris)18: 234-246, 1929.
- 3) Olsson, C. A.: Adrenal myelolipoma. Surgery 73: 665-670, 1973.
- 4) McDonnell, W. V.: Myelolipomas of adrenal. Arch. Pathol. 61: 416-419, 1956.
- 5) Dyckman, J.: Myelolipoma of the adrenal with clinical features and surgical excision. J. Mt. Sinai. Hosp. N.Y. 24: 793-796, 1957.
- 6) Hofstatter, R. and Schnitzler, H.: Uber einen ungewohnlich grossen retroperitonealen Tumor von eigenartigem histologischen Aufbau. Arch. Klin. Chir. 140: 567, 1926.

- 7) **Woolley, P. G.**: Heteroplastic bone and bone marrow formation associated with tuberculosis in the adrenal. *J. Lab. Clin. Med.* **1**: 502-508, 1915.
- 8) **Giffen, H. K.**: Myelolipoma of the adrenals. Report of seven cases. *Am. J. Pathol.* **23**: 613-625, 1974.
- 9) **Plaut, A.**: Myelolipoma of the adrenal cortex. *Am. J. Pathol.* **34**: 487-507, 1958.
- 10) **Selye, H.**: Holmonally induced transformation of adrenal into myeloid tissue. *Am. J. Pathol.* **26**: 211-213, 1950.
- 11) **Olsson, C. A.**: Adrenal myelolipoma. *Surgery* **73**: 665-670, 1973.
- 12) **Behan, M.**: Myelolipoma of the adrenal; Two cases with ultrasound and CT findings. *Am. J. Rosentgenol.* **129**: 993-996, 1977.
- 13) **Tulcinsky, D. B.**: Myelolipoma of the adrenal gland. *Brit. J. Surg.* **57**: 465-467, 1970.
- 14) **Dunnick, N. R.**: Localization of functional adrenal tumors by computed tomography and venous sampling. *Radiology* **142**: 429, 1982.
- 15) **Friedman, A. C.**: Computed tomography of abdominal fatty mass. *Radiology* **139**: 415-429, 1981.
- 16) **Stephens, D. H.**: Diagnosis and evaluation of retroperitoneal tumors by computed tomography. *Am. J. Resentgenol.* **129**: 395-402, 1977.
- 17) **Lamki, N.**: CT appearance of adrenal myelolipoma. *J. Comput. Assist. Tomogr.* **6**: 30-31, 1982.
- 18) **櫻村博正**: 超音波ガイド下穿刺吸引細胞診が有用であった adrenal myelolipoma の1例. *日消会誌.* **79**: 1788-1793, 1982.
- 19) **丸山健行**: Adrenal myelolipoma の2例. *臨放.* **31**: 753-756, 1986.
- 20) **DeBois, G. G. and DeMay, R. M.**: Adrenal myelolipoma diagnosis by computed-tomography-guided fine-needle aspiration. *Cancer* **55**: 848-850, 1985.