

症例報告

術前診断が困難だった副腎出血の1例

近 清 素 也, 吉 川 幸 造, 島 田 光 生, 栗 田 信 浩, 岩 田 貴,
佐 藤 宏 彦, 東 島 潤, 西 正 暁, 柏 原 秀 也, 高 須 千 絵,
松 本 規 子, 江 藤 祥 平

徳島大学病院消化器・移植外科

(平成25年10月31日受付) (平成25年12月4日受理)

症例は70歳代の男性。数ヵ月前より増大する左上腹部腫瘍を主訴に当院に紹介され受診した。CT, MRIでは辺縁は造影効果を伴い、内部は壊死を疑う所見であり、PET-CTではSUV maxの上昇を認めた。内分泌学的検査では正常範囲内であった。以上より内部壊死を伴う非機能性副腎腫瘍と診断し悪性の可能性が否定できないため開腹下左副腎腫瘍摘出術を行った。腫瘍は軟であり横行結腸間膜の背側に存在しており、表面平滑で最大径15cm、重量は860gであった。内部は隔壁を有し、暗褐色の血液と凝血塊を認めた。病理組織学的検査では腫瘍内部に血腫を形成し、一部に器質化を認めた。周囲は線維性の被膜が見られ、外側に圧排された副腎組織を認められたが、明らかな腫瘍性病変は認めなかった。術後経過は良好であった。術前に診断困難な副腎腫瘍を経験したので報告する。

特発性副腎出血は比較的まれな疾患であり、副腎腫瘍との鑑別が困難と報告されている¹⁾。今回われわれは術前診断が困難であった副腎出血の1症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：70歳代、男性

主訴：腹部膨満感

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：高血圧(内服治療中)。胃潰瘍にて幽門側胃切除術、Billroth-I法再建(33年前)。

現病歴：数ヵ月前より増悪する左腹部の膨満を主訴に前

医を受診した。腹部CT, MRIにて腫瘍性病変を疑われ、当院に紹介された。

入院時現症：身長165cm、体重67kg、体格中等度であった。体温・血圧・脈拍は正常範囲内であった。眼瞼結膜に貧血・黄染なし。左上腹部に可動性のある腫瘍を触知した。圧痛はなく、表在リンパ節は触知されなかった。上腹部正中に手術創痕を認めた。

入院時検査所見：血液一般、生化学検査ともに異常を認めず、腫瘍マーカーもCEA3.4ng/ml, CA19-9 28U/ml, DUPAN-2<25U/ml, Span-110U/mlと基準値内であった。

内分泌学的検査：副腎皮質機能検査では、ACTH30.3 pg/ml(基準値7.7-63.1)、コルチゾール15.0μg/dl(6.4-21.0)、尿中メタネフリン0.14mg/day(0.04-0.19)、ノルメタネフリン0.13mg/day(0.09-0.33)、血中アドレナリン17pg/ml(100以下)、ノルアドレナリン117pg/ml(100-450)、ドーパミン5未満pg/ml(20以下)はいずれも基準値内であった。

腹部CT所見：左上腹部に境界明瞭、平滑で内部は不均一に低吸収域が混在する腫瘍を認めた。腫瘍の圧排により左腎盂、尿管上部の拡張を認めた。造影CTでは、動脈相より辺縁に結節状に濃染され、静脈相、平衡相にかけて造影効果が増強されたが、いずれの相でも内部は造影効果が乏しかった(Figure 1)。流入動脈、流出静脈などははっきりしなかった。

PET-CT所見：左上腹部腫瘍の辺縁優位に集積を軽度認めた(SUVmax 3.0)が、内部は集積低下もしくは欠損の部分の部分を認めた(Figure 2)。

腹部MRI所見：腫瘍の内部はT1WIで低～淡い高信号、

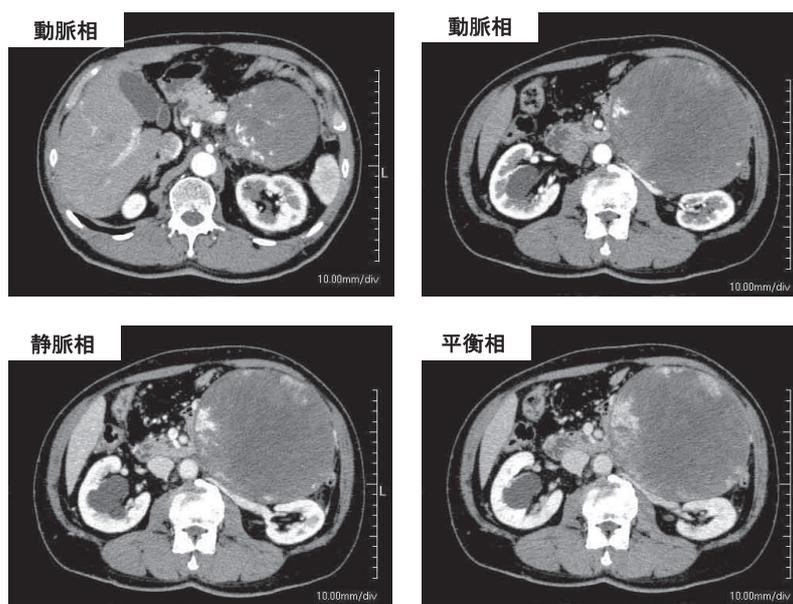


Figure 1. 腹部造影 CT 横断像
腫瘍の内部は不均一に低吸収域が混在していた。造影 CT では、動脈相より辺縁に結節状に濃染され、静脈相、平衡相にかけて造影効果が増強されたが、いずれの相でも内部は造影効果が乏しかった。

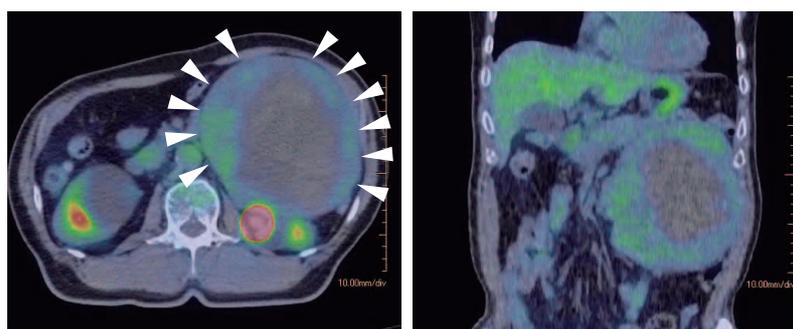


Figure 2. PET-CT
腫瘍の辺縁優位 (矢頭) に SUVmax 3.0 の集積を認めたが、内部は集積低下もしくは欠損の部分も認めた。

T2WI で著明な高信号内に隔壁様や結節状の低信号域が混在していた。辺縁は T2WI で低信号の被膜様構造を認めた。DWI ではモザイク状の高・低信号が混在し、Gd 造影では早期に辺縁に結節状の濃染域がみられ、後期相にかけて遷延したが、中心部は増強効果に乏しかった (Figure 3)。

以上の画像診断より、内部壊死を伴う巨大な非機能性副腎腫瘍の診断ではあるが、副腎癌や褐色細胞腫も考慮し、患者に十分な説明を行った後、術前からの輸液管理、術中の循環動態モニタリングを行い、万全の体制で、開腹左副腎腫瘍摘出術を行った。

手術所見：前回の幽門側胃切除術の手術創痕に左横切開を加えて開腹した。腹腔内の癒着は軽度であった。腫瘍

は軟であり横行結腸間膜の背側に存在していた (Figure 4)。下腸間膜静脈が軽度怒張していた。横行結腸、脾彎曲部、下行結腸を授動し、頭側は脾臓との間を剥離した。左腎静脈周囲まで剥離し、これに流入する静脈が 2 本あり結紮切離した。腫瘍に流入する動脈は同定できなかった。腫瘍は左副腎から連続して突出する形であり、左副腎を一部切除する形で血管鉗子で把持した後にメスで切離し摘出した。術中明らかな血圧の変動は認めなかった。

摘出標本所見：大きさは 15×14×14cm、表面平滑な腫瘍であり総重量は 860g であった。新鮮標本の断面では内部は隔壁を有し、暗褐色の血液と凝血塊を認めた (Figure 5)。

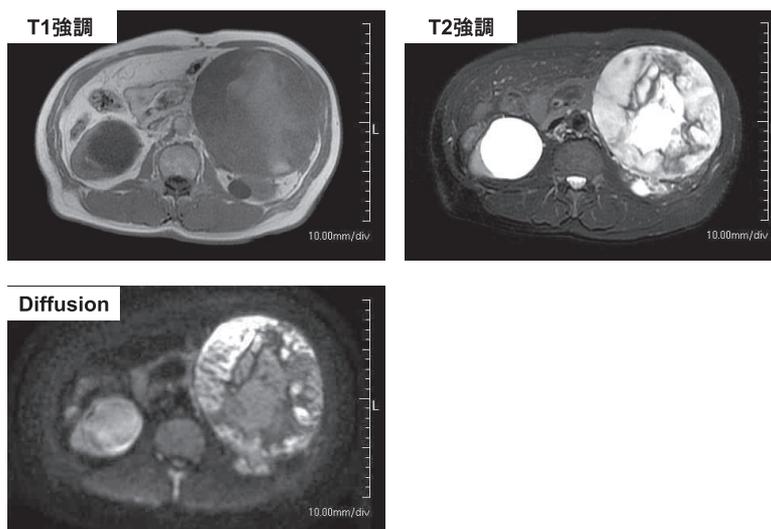


Figure 3. 腹部MRI横断像
腫瘍辺縁はT2WIで低信号の被膜様構造を認めた。内部はT1WIで低～淡い高信号、T2WIで著明な高信号内に隔壁様や結節状の低信号域が混在していた。DWIではモザイク状の高・低信号が混在していた。

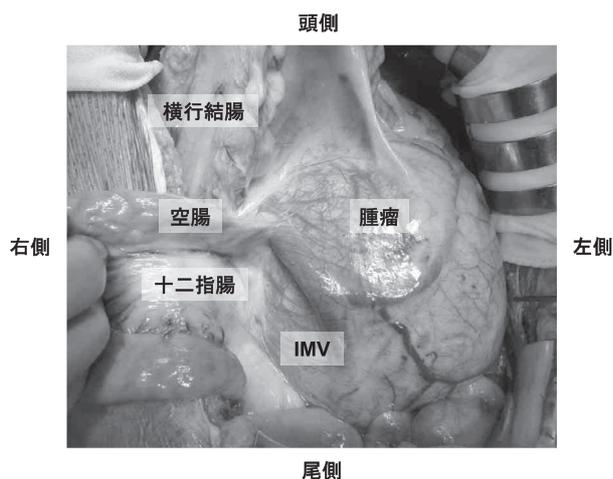


Figure 4. 手術時腹部所見
横行結腸間膜の背側に軟の腫瘍を認めた。下腸間膜静脈が軽度怒張していた。左腎静脈に流入する静脈が2本あり結紮切離した。腫瘍に流入する動脈は同定できなかった。

病理組織学的検査所見：腫瘍内部は血腫が形成されており、一部に器質化を認めた。結節の周囲は線維性の被膜が見られ、外側に圧排された副腎組織を認めたが、明らかな腫瘍性病変は認めなかった。

術後経過：術後経過は良好であり術後8日目で退院した。

考 察

副腎出血は剖検例では約0.14%から1.1%に認めると報告されている¹⁾。原因としては外傷性と非外傷性とに分けられるが、外傷性によるものが63%を占めると報告されている²⁾。一方、明らかな外傷と関連なく発症する非外傷性のものとしては、腫瘍性病変、血液凝固異常、抗凝固剤使用による出血性素因、さまざまなストレス、副腎動脈瘤、副腎静脈血栓、原因不明の特発性出血など

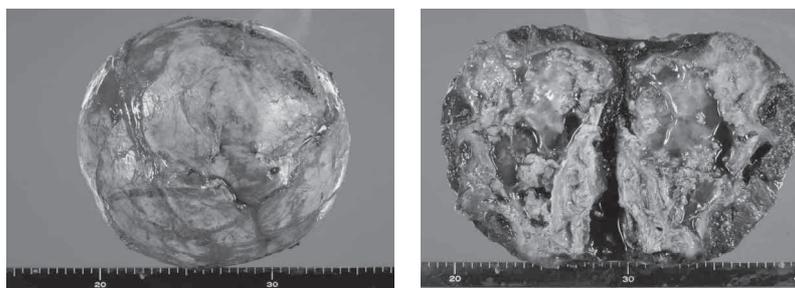


Figure 5. 摘出組織
腫瘍は表面平滑であり、大きさは15×14×14cm、総重量は860gであった。内部は隔壁を有し、暗褐色の血液と凝血塊を認めた。

があげられる³⁾。腫瘍性病変としては、褐色細胞腫によるものが最も多いとされている⁴⁾が、他には副腎皮質癌⁵⁾、副腎皮質腺腫⁶⁾、転移性腫瘍（肺癌など）⁷⁾、骨髄脂肪腫などが報告されている。

副腎出血の機序として、副腎の解剖学的な因子の関与が指摘されている⁸⁾。副腎は流入動脈が多い一方で、流出静脈が少なく、血管壁も脆弱である。このため、大静脈圧が何らかの原因で上昇すると副腎内圧は上昇し、副腎出血が生じると考えられている。右側は左側と比較して大静脈圧の影響を受けやすいことから、副腎出血は右側に多いとされている。また、身体的ストレスなどで、ストレスホルモンである副腎刺激ホルモン（ACTH）が分泌されると、生理的に副腎血流が増加され、さらに副腎皮質に局所的な壊死をもたらすとされている⁹⁾。

副腎出血の症状としては、腹部・脇腹などの痛み、食欲不振・悪心・嘔吐、精神症状、発熱、低血圧などがあるが、腹部疾患を疑わせるものの特異的な症状に乏しい⁸⁾。副腎が後腹膜臓器であり Gerota 筋膜に囲まれているため、副腎実質内や副腎周囲に限局し、無症状に経過し偶発的に発見されるもの^{10,11)}が多いが、本症例のように後腹膜に巨大血腫を形成するもの¹²⁾、急性腹症をきたすもの¹³⁾や出血性ショックをきたすもの¹⁴⁾までさまざまである。

画像上、副腎出血は発症時期により異なる。腹部 CT では球形から卵円形で、急性期では high density、急性期から亜急性期にはヘモジデリンの経時的な変化により多様な density となる。慢性期にはサイズが縮小し器質化すれば石灰化を伴い low density な嚢胞性腫瘍として描出される。腹部 MRI では、急性期には T1 強調画像で iso から low intensity、T2 強調画像で high intensity、亜急性期には T1、T2 ともに high intensity として描出される。慢性期にかけては T1 で high intensity、T2 では徐々に low intensity へ変化していくがヘモジデリン沈着や被膜の線維化を反映していると報告されている³⁾。このような画像上、経時的な変化が認められることが副腎出血の一助となることが示唆されている。本症例では数ヶ月前より増大する腫瘍であり、画像所見からは過去に出血をきたし被膜を伴う器質化した腫瘍の辺縁に、再度、出血をきたしたものと考えられる。

副腎の生理的な FDG 集積は70%程度に認められ、SUV max は0.95～2.46の範囲とされる¹⁵⁾。副腎への FDG 集積を認める悪性腫瘍には、副腎皮質癌、悪性リンパ腫などの副腎原発悪性腫瘍や肺癌、乳癌などからの副腎転

移などがある¹⁶⁾。悪性腫瘍以外にも、副腎の良性的褐色細胞腫、腺腫、過形成、副腎出血なども FDG 集積を認め、鑑別を要する。良性腫瘍は FDG 集積陰性または淡い集積にとどまるのに対して、褐色細胞腫では比較的に高い集積を認め鑑別に用いられる¹⁷⁾。SUV max > 2.68 または 3.1 を悪性病変とする基準などがあるが議論の余地があるところであり、悪性腫瘍と同程度に高集積を示す良性病変があるため注意を要する¹⁸⁾。本症例では腫瘍辺縁は SUV max 3.0 であり、この数値からは良悪性を判断するのは困難であったと考えられる。

副腎出血の治療は、全身状態が安定しており、腫瘍性病変が否定的である場合には輸液や輸血などの保存的治療を行い、CT や MRI における上記所見を踏まえつつ経過観察すればよいとされる。血管造影などにて出血源が特定できるものにはたいしては経カテーテル的動脈塞栓症（TAE）を行うことも選択肢の一つである⁴⁾が、腫瘍出血と特発性出血との鑑別は困難である。画像上、悪性を示唆する所見や大きさが 6 cm を超える場合は手術適応とされる¹⁹⁾。本症例では腫瘍径が 15 cm と大きく画像上も悪性所見を否定できなかったため手術適応とした。また、褐色細胞腫が疑われる症例の手術時には、術前に α 遮断薬の投与により血管を拡張させた後、十分な輸液や輸血を行って循環血液量を回復させてから行うこと、術後は経時的な低血圧、低血糖のチェックが必要である。また、術中に循環動態の変動から褐色細胞腫が疑われる場合は、血中へのカテコールアミン流出や機械的刺激などによりショックをきたす可能性があるため、決して腫瘍の摘出を試みてはいけないとされている²⁰⁾。

「副腎出血」「副腎血腫」と「特発性」をキーワードに医学中央雑誌で1993年から2013年で検索し得た症例は19例^{4, 10-14, 21-33)}であった。自験例を含めた20例で検討すると、平均年齢64.1歳（22～78歳）、男性10例、女性10例であり、左12例、右8例と左側が多かった。初発症状は、腹痛（側腹部痛含め）が5例、腰背部痛が2例、腹部腫瘍触知が4例、発熱が2例で、症状なしが8例であった。術前診断では腫瘍性病変を認めず特発性副腎出血・血腫と診断されたものが3例であった。残りの16例は副腎腫瘍からの出血、血管腫もしくは副腎腫瘍の診断であった。治療は特発性副腎出血・血腫と診断された1例は輸血、輸液などの保存的治療が行われ、2例は手術が行われていた。残りの16例はいずれも悪性腫瘍の可能性を否定できず切除術が行われていた。腫瘍最大径は平

均11.4cm (3.3~25cm), 重量は平均1388g (48~4700g)であった。

結 語

今回われわれは術前診断が困難であった副腎出血の症例を経験したので, 文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Xarl, V. P., Steele, A. A., Davis, P. J., Buescher, E. S., *et al.*: Adrenal hemorrhage in the adult. *Medicine*, 57 : 211-221, 1978
- 2) Becker, H., Cesnik, H., Tscheme, H.: Adrenal gland hemorrhage: clinical aspects and pathology. *Munch. Med. Wochenschr.*, 109 : 2646-2650, 1967
- 3) Kawashima, A., Sandler, C. M., Ernest, R. D., Takahashi, N., *et al.*: Imaging of nontraumatic hemorrhage of the adrenal gland. *Radiographics*, 19 : 949-963, 1999
- 4) 丹羽篤朗, 隅田英典, 水谷優, 成田守 他: 急性腹症を呈した巨大後腹膜血腫を形成する副腎出血の1例. *日救急医学会誌*, 4 : 256-261, 1993
- 5) 桑田真臣, 細川幸成, 高田聡, 熊本廣実 他: 腫瘍内出血に伴う胸背部痛を契機に発見された副腎皮質癌の1例. *泌紀*, 55 : 599-602, 2009
- 6) 坪井美樹, 堀口淳, 時庭英彰, 内田紗弥香 他: 術前診断が困難であった腫瘍内出血を伴った副腎皮質腺腫の1例. *日臨外会誌*, 73 : 2372-2376, 2012
- 7) 金子英樹, 久田剛志, 加藤真理, 栗林志行 他: 大量の副腎出血を来した肺腺癌の一例. *Kitakanto Med. J.*, 54 : 311-315, 2004
- 8) 野村馨, 河野敦, 出村博: 副腎出血. *日本臨床 別冊巻; 領域別症候群1*, 日本臨床社, 東京, 1993, pp. 534-536
- 9) Streeten, D. H. P.: Adrenal hemorrhage. *Endocrinologist*, 6 : 277-284, 1996
- 10) 富山裕介, 佐藤勇司, 生駒彩, 柿木寛明 他: 無症候特発性副腎出血の1例. *西日泌*, 71 : 70-72, 2009
- 11) 郷力昭宏, 牟田口和昭, 世古昭三: 特発性副腎出血の1例. *西日泌*, 71 : 533-535, 2009
- 12) 榮福亮三, 越野保人, 阿部好弘, 岩田敏伸 他: 巨大後腹膜腫瘍形成をきたした特発性副腎出血の1例. *臨外*, 57 : 695-698, 2002
- 13) 松谷亮, 池田大助, 布施春樹, 平野章治 他: 急性腹症をきたした特発性副腎出血の1例. *泌外*, 18 : 725-727, 2005
- 14) 中田誠司, 佐藤仁, 高橋稔, 福田敬 他: 急性腹症を呈した副腎出血の1例. *Kitakanto Med. J.*, 47 : 357-359, 1997
- 15) Bagheri, B., Maurer, A. H., Cone, L., Doss, M., *et al.*: Characterization of the normal adrenal gland with 18F-FDG PET/CT. *J. Nucl. Med.*, 45 : 1340-1343, 2004
- 16) Kumar, R., Xiu, Y., Mavi, A., El-Haddad, G., *et al.*: FDG-PET imaging in primary bilateral adrenal lymphoma: a case report and review of the literature. *Clin. Nucl. Med.*, 30 : 222-230, 2005
- 17) Mann, G. N., Link, J. M., Pham, P., Pickett, C. A., *et al.*: [11C] methoxyhydroxyephedrine and [18F] fluorodeoxyglucose positron emission tomography improve clinical decision making in suspected pheochromocytoma. *Ann. Surg. Oncol.*, 13 : 187-197, 2006
- 18) Rao, S. K., Caride, V. J., Ponn, R., Giakovis, E., *et al.*: F-18 fluorodeoxyglucose positron emission tomography-positive benign adrenal cortical adenoma: imaging features and pathologic correlation. *Clin. Nucl. Med.*, 29 : 300-302, 2004
- 19) Casale, P., Grady, R. W., Joyner, B. D., Zeltser, I. S., *et al.*: Comparison of dismembered and nondismembered laparoscopic pyeloplasty in the pediatric patient. *J. Endourol.*, 18 : 875-878, 2004
- 20) 田代勝己, 山本健, 高崎真弓, 弓削孟文 他: 血圧変動が著しい褐色細胞腫患者の麻酔. *麻酔科診療ブラクティス8 よくある術前合併症の評価と麻酔計画*, 東京, 文光堂, 2002, pp. 142-143
- 21) 鈴木範宜, 高木良雄, 柳瀬雅裕, 椎木衛 他: 急性腹症を呈した特発性副腎出血. *臨泌*, 50 : 309-311, 1996
- 22) 坂元武, 東治人, 岩本勇作, 瀬川直樹 他: 特発性副腎出血の1例. *泌紀*, 44 : 805-807, 1998
- 23) 佐藤元, 市野学, 柳岡正範, 石井裕 他: 特発性副腎出血の1例. *静岡赤十字病研報*, 22 : 93-96, 2002
- 24) 山口史朗, 橋本治, 須賀昭信, 矢野誠司 他: 特発性副腎血腫の1例. *泌紀*, 48 : 347-350, 2002
- 25) 山下智子, 藤井靖久, 田所学, 中西泰一 他: 成人の無症候性副腎出血の1例. *泌紀*, 49 : 531-534, 2003
- 26) Kobayashi, T., Uenoyama, S., Miura, K., Takehara, Y.:

- Idiopathic Unilateral Adrenal Hematoma : Report of a Case. *Surg. Today*, 34 : 279-282, 2004
- 27) 安岡康夫, 吉田敦, 佐伯隆人 : 巨大後腹膜腫瘤として発見された特発性副腎出血の1例. *日臨外会誌*, 66 : 2564-2568, 2005
- 28) 迫田順, 内田政史, 馬場健吉, 長田周二 他 : 成人の特発性副腎血腫の1例. *臨放*, 53 : 689-693, 2008
- 29) 松田哲朗, 四方哲, 湊博史, 相川一郎 : 特発性副腎血腫の1例. *臨外*, 63 : 1619-1622, 2008
- 30) 木下竜弥, 高山仁志, 桃原実大, 中井康友 他 : 副腎出血の1例. *泌外*, 22 : 809-812, 2009
- 31) 小泉大, 佐田尚宏, 佐久間康成, 清水敦 他 : 巨大な特発性副腎血腫の1例. *日臨外会誌*, 71 : 1314-1318, 2010
- 32) 小原則博, 蒲原行雄, 赤司有史, 大久保仁 他 : 副腎に発生した巨大な chronic expanding hematoma の1切除例. *内分泌外科*, 27 : 122-127, 2010
- 33) 坂田綾子, 榎山和秀, 野口剛, 佐野太 他 : 特発性副腎血腫の1例. *泌外*, 25 : 2043-2046, 2012

A case of idiopathic adrenal hemorrhage that was difficult to discriminate from a giant adrenal tumor

Motoya Chikakiyo, Kozo Yoshikawa, Mitsuo Shimada, Nobuhiro Kurita, Takashi Iwata, Hirohiko Sato, Jun Higashijima, Masaaki Nishi, Hideya Kashihara, Chie Takasu, Noriko Matsumoto, and Shohei Eto

Department of Digestive and Transplant Surgery, Tokushima University, Tokushima, Japan

SUMMARY

A 73-year-old man was admitted to the hospital because of a growing tumor in his left upper abdomen. The tumor was peripherally enhanced and filled with necrotic tissue by contrast CT. By PET-CT, SUV max was high in the peripheral area of the tumor. Endocrinological data for adrenal function were within the normal range. Accordingly, we diagnosed a nonfunctional adrenal tumor. Left adrenalectomy was performed, because a possibility of malignant tumor could not be ruled out and abdominal tumor was growing fast for a few months. At laparotomy, we saw the dorsal displacement of the transverse colon by a giant cystic tumor, which has several septums and was filled with old bloody fluid components. The resected tumor was 15cm in maximum diameter and 860g in weight. Histopathological diagnosis was adrenal hemorrhage without malignant findings.

Key words : adrenal hemorrhage, adrenal tumor, nonfunctional adrenal tumor