症 例

S 状結腸憩室穿孔を契機に発見された無症候性副腎外褐色細胞腫の 1 例

静岡厚生病院外科

小 出 紀 正 水 野 伸 一 浅 野 英 一
高 橋 泰 夫 下 地 英 機

症例は63歳、男性。1995年9月14日下腹部痛が出現し、当院を紹介受診した。汎発性腹膜炎の診断で緊急開腹術を施行した。S 状結腸穿孔を認め、S 状結腸切除術、人工肛門造設術を施行した。術前腹部 CT および US にて嚢胞を有する右副腎腫瘍を疑ったが、緊急手術のためそのままとした。その後腫瘍のわずかな増大傾向を認め、1996年3月14日精査治療目的で入院した。術前画像診断と内分泌学的検査から副腎または副腎外の褐色細胞腫と診断し、腫瘍摘出術、右副腎摘出術を施行した。病理組織学的検査で副腎外褐色細胞腫と診断した。経過中高血圧クリーゼは起こさなかったが、嚢胞内に高濃度のカテコールアミンが含まれていた。

無症候性嚢胞性褐色細胞腫では内容液に高濃度のカテコールアミンを含んでいる可能性を念頭において処置しなければならないと考えられた。

索引用語：無症候性褐色細胞腫、副腎外褐色細胞腫、嚢胞性褐色細胞腫

はじめに

褐色細胞腫はカテコールアミンの産生により高血圧をはじめ種々の症状を呈する疾患である。しかし、近年画像診断の進歩に伴い、特有の臨床症状を示さない偶発腫瘍として発見される機会が増加している¹⁾²⁾。

今回われわれは、S 状結腸憩室穿孔を契機に発見された無症候性副腎外褐色細胞腫の 1 例を経験したので若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：63歳、男性。

主訴：下腹部痛。

既往歴：内痔核、左鼠径ヘルニア根治術。

家族歴：父が糖尿病。

現病歴：1995年9月14日朝、突然下腹部痛が出現し、近医を受診し、急性腹症の診断で当院を紹介受診した。汎発性腹膜炎の診断で緊急手術を施行、術中 S 状結腸憩室穿孔を認め S 状結腸切除術、人工肛門造設術を施行した。切除標本には多数の憩室があり、15×8 mm 大の穿孔を認めた(図1)。病理組織検査では、強い炎

症細胞浸潤を伴い、一部の筋層の欠損と粘膜上皮の陥入を認め、その先端は壊死し欠損しており、憩室炎穿孔と診断された。術前腹部 CT で下大静脈の背側に 5×3 cm 大の腫瘍を認め、右副腎褐色細胞腫を疑ったが初回手術時は緊急手術であり、処置をせず経過観察とした。術後内分泌学的検査では血中コルチゾンと尿中 VMA の軽度上昇を認めるのみであった。10月26日に退院し、1ヵ月後に人工肛門閉鎖術を施行した。以後外来で経過観察していたが腫瘍の増大傾向を認め

図1 切除標本：切除標本の肛門側に15×8 mm の穿孔を認めた。

2000年6月12日受付 2000年9月28日採用

〈所属施設住所〉

〒420-8623 静岡市北番町23

たため、1996年3月14日精査治療目的で入院した。なお、2回の手術は共に挿管のうえ全身麻酔下に行った。

入院時現症：血圧118/76、脈拍76整。腹部は平坦、軟で手術創を認めた。

入院時血液生化学検査：血糖が119mg/dl と軽度上昇している以外に異常は認めなかった。

内分泌学的検査 (表1)：血中ノルアドレナリンが963pg/ml、血中VMAが19.2ng/mlとそれぞれ上昇し、さらに一日尿中アドレナリンが28.0 μ g、ノルアドレナリンが245.6 μ g、ドーパミンが1438.3 μ g、VMAが9.9mgと上昇していた。

腹部超音波検査：下大静脈背側に6.2 $\times$ 5.8 $\times$ 4 cm大の類円形で、一部に嚢胞を伴う内部エコーが不均一な腫瘤を認めた。

表1 内分泌学的検査

血中	アドレナリン	30	pg/ml	(100以下)
	ノルアドレナリン	963	pg/ml	(100~450)
	ドーパミン	13	pg/ml	(20以下)
	VMA	19.2	ng/ml	(3~9)
尿中	アドレナリン	28.0	μ g/DAY	(3.0~15.0)
	ノルアドレナリン	245.6	μ g/DAY	(26~121)
	ドーパミン	1438.3	μ g/DAY	(190~740)
	VMA	9.9	mg/DAY	(1.3~5.1)

腹部 CT 検査 (図2)：下大静脈背側に6 $\times$ 3 cm大の境界明瞭な low density mass を認め、造影 CT では内部が不均一に造影され、一部に嚢胞を認めた。

腹部 MRI 検査 (図3)：腫瘤は T1 強調画像で低信号、T2 強調画像では高信号を示した。

以上より右副腎または傍神経節由来の褐色細胞腫の術前診断で手術を施行した。J 型切開の開胸開腹によるアプローチで、交感神経幹と連続する腫瘍と右副腎を摘出した。術中異常高血圧を認めなかった。

切除標本肉眼所見 (図4)：新鮮切除標本では6 $\times$ 4.8 $\times$ 3.7cmの灰白色の被膜に包まれた類円形の腫瘍で、内部に暗赤褐色の液体を含む嚢胞を認めた。固定後断面では、副腎を圧排する褐色の腫瘍で、一部に出血、嚢胞を認めた。

病理組織学的検査 (図5)：大型の神経節細胞様の細胞と線維細胞から成り、右副腎とは境界を有し、副腎外褐色細胞腫と診断した。

腫瘍内嚢胞液カテコラミン濃度 (表2)：血中カテコラミン濃度のそれぞれ、アドレナリンでは約10万倍、ノルアドレナリンでは約3万倍、ドーパミンでは約6千倍であった。

術後内分泌学的検査：血中、尿中カテコラミンはともに正常範囲内に回復し、術後経過良好で21日目に退院した。

図2 腹部 CT 検査：(a)下大静脈背側に6 $\times$ 3 cm大の境界明瞭な low density mass を認めた。(b)造影 CT では内部が不均一に造影され、一部に嚢胞を認めた。

図3 腹部MRI検査：(a) T1強調画像で低信号、
(b) T2強調画像で高信号。

$\frac{a}{b}$

考 察

褐色細胞腫は、副腎髄質あるいは傍神経節などのクロム親和性組織より発生する腫瘍で、前者を副腎性、後者を副腎外と呼ぶのが一般的で、10%程度が副腎外に発生する。この腫瘍はカテコールアミンを産生、放出し、高血圧をはじめ種々の症状を呈する。しかし、近年画像診断の進歩に伴い、特有の臨床症状を示さない偶発腫瘍として発見される機会が増加している¹⁾²⁾。

偶発腫瘍の種類は、伊藤³⁾、猿田ら⁴⁾、Asoら⁵⁾の報告から副腎皮質腺腫、褐色細胞腫が多く、次いで神経節神経腫、副腎嚢胞、副腎癌がみられる。これらの報告から鑑別診断には特に副腎皮質腺腫と外科的治療を必要とする機能性副腎皮質腺腫、褐色細胞腫、副腎癌などがあげられる。

診断方法には、内分泌学的検査と画像診断があり、内分泌学的検査により機能性副腎腫瘍は鑑別診断できる。しかし、高血圧クリーゼを合併する褐色細胞腫では、自験例のように他疾患による急性腹痛のため緊急手術が必要で十分な内分泌学的検査ができない症例や、稀ではあるが正常値を示す症例⁶⁾もあり、偶発腫瘍

図4 切除標本肉眼所見：(a)新鮮切除標本では6×4.8×3.7cmの灰白色の被膜に包まれた類円形の腫瘍で、内部に暗赤褐色の液体を含む嚢胞を認めた。(b)固定後断面では、副腎を圧排する褐色の腫瘍で、一部に出血、嚢胞を認めた。

$\frac{a}{b}$

図5 病理組織学的検査：大型の神経節様の細胞と線維細胞から成り、副腎外褐色細胞腫と診断した。

ではたえずこの疾患を念頭に置き治療すべきであると思われた。

画像診断では、副腎腺腫は通常3 cm以下のことが多く、CTでは低吸収性腫瘍で造影効果を認める。MRIのT1強調画像で肝の信号強度と同等かやや低く、T2

表 2 腫瘍内囊胞液カテコラミン濃度

アドレナリン	11490000 pg/ml (100以下)
ノルアドレナリン	13830000 pg/ml (100~450)
ドーパミン	123400 pg/ml (20以下)
VMA	23.6 ng/ml (3~9)

強調画像でやや高い信号強度を呈することが多い⁷⁾。副腎癌は 5 cm 以上のことが多く、CT では分葉状の輪郭で内部不均一でしばしば石灰化を認める。造影効果も不均一である⁸⁾。MRI では T1, T2 強調画像で高信号強度を示すが、鑑別診断が困難なこともある⁹⁾。褐色細胞腫は円形または楕円形の腫瘍で、内部が均一であることもあるが、しばしば出血、壊死、嚢胞性変化、石灰化の所見を認める。腫瘍の充実部分は造影剤により著明な造影効果を認める。MRI では T2 強調画像で著明な高信号強度を示すのが特徴とされ、また T1 強調画像では、低信号強度を示すことが多いが、壊死部ではより低信号強度を示し、出血部では高信号強度を示す。さらに褐色細胞腫では存在診断、質的診断に¹³¹I-MIBG シンチグラムが有用であるとされている¹⁰⁾。自験例は初回手術時の CT 所見から褐色細胞腫が疑われ、MRI を行いより確診がえられた。内分泌学的検査でははじめは血中コルチゾンと尿中 VMA のみ軽度上昇していたが、精査を繰り返すことにより確診がえられた。しかし、術前に副腎原発かまたは副腎外の褐色細胞腫であるかは画像所見から診断できなかった。ところが、一般的に副腎外の褐色細胞腫ではノルアドレナリンをアドレナリンに転換する酵素が少なくノルアドレナリン優位であることから、自験例は副腎外褐色細胞腫と術前診断できたのではないかと考えられた。

褐色細胞腫の治療は外科的治療が第一選択となる。自験例は初回手術時は褐色細胞腫を画像的に疑ったが S 状結腸憩室穿孔という緊急手術であり S 状結腸切除術、人工肛門造設術のみ施行した。二回目の手術時は患者の強い拒否があり腫瘍摘出術は見送りとなった。

自験例は臨床症状もなく、二回の手術時に高血圧クリーゼを合併しなかった。しかし、褐色細胞腫と術前診断したので良好な視野を得るために開胸開腹のアプローチで腫瘍摘出を行った。近年画像診断が向上したにもかかわらず術中高血圧クリーゼを起こした報告^{11)~13)}も散見される。自験例では嚢胞内に高濃度のカテコールアミンが含まれており術中の操作によっては、高血圧クリーゼの発症の可能性はあったと思われる。

た。これらのことから術中腫瘍に無理な操作を加えず摘出できるような良好な視野の確保ができるアプローチを選択することが重要であると思われる。

結 語

S 状結腸憩室穿孔を契機に発見された無症候性副腎外褐色細胞腫の 1 例を経験した。無症候性嚢胞性褐色細胞腫は内容液に高濃度のカテコールアミンを含んでいる可能性を念頭におき、摘出時には良好な視野の確保と腫瘍に無理な操作を加えないことが重要であると思われる。

文 献

- 1) 浦部真平, 佐藤久志, 星野俊明他: von Recklinghausen 病に合併した無症候性褐色細胞腫の 1 例. 臨放線 39: 1751-1754, 1994
- 2) 高見 博, 三吉 博, 関根 勝他: 無症候性褐色細胞腫に対する腹腔鏡下右副腎摘出術. 内分泌外科 12: 259-261, 1995
- 3) 伊藤悠基夫: 副腎の偶発腫瘍—全国アンケート調査報告—. 内分泌外科 6: 245-251, 1989
- 4) 猿田享男, 鈴木洋道, 柴田洋孝: 副腎インシデンタローマ. 日内分泌会誌 69: 509-519, 1993
- 5) Aso Y, Homma Y: A survey on incidental adrenal tumors in Japan. J Urol 147: 1478-1481, 1992
- 6) 船橋啓臣, 高木 弘: 副腎 Incidentaloma—Natural history と治療による予後. 内分泌外科 13: 105-108, 1996
- 7) 小林成司, 成松芳明, 谷本伸弘他: 副腎 CT・MRI の見方. medicina 28: 1934-1940, 1991
- 8) 高尾雅也, 清水俊次, 浅野友彦他: 副腎偶発腫瘍の臨床的検討—副腎癌との鑑別の重要性について. 内分泌外科 8: 289-294, 1991
- 9) 松田明美, 江頭完治, 中村克己他: 副腎腫瘍性疾患の MRI. 臨放線 39: 1043-1049, 1994
- 10) 河野 敦, 日下部きよ子, 伊藤悠基夫他: 褐色細胞腫の画像診断. 内分泌外科 11: 343-347, 1994
- 11) 野崎 浩, 和田 了, 百瀬隆二他: 異所性褐色細胞腫の 1 例. 日臨外医会誌 56: 1677-1681, 1995
- 12) 与儀喜邦, 佐野浩一郎, 土持昭男他: 嚢胞性変化を伴った副腎外褐色細胞腫の 1 例. 日臨外医会誌 58: 2434-2438, 1997
- 13) 西塚 至, 高橋正純, 池 秀之他: 術中高血圧を呈した左腹腔神経節原発パラガングリオーマの 1 例. 日臨外医会誌 59: 2394-2399, 1988

A CASE OF ASYMPTOMATIC EXTRA-ADRENAL PHEOCHROMOCYTOMA AFTER PERFORATION OF DIVERTICULUM OF THE SIGMOID COLON

Norimasa KOIDE, Shinichi MIZUNO, Eiichi ASANO,

Yasuo TAKAHASHI and Hideki SHIMOJI

Department of Surgery, Shizuoka Kousei General Hospital

We reported a case of asymptomatic extra-adrenal pheochromocytoma after perforating diverticulum of the sigmoid colon. A 63-year-old man was admitted to the hospital because of lower abdominal pain. Sigmoidectomy and atemporary colostomy were performed, and the post operative course was uneventful. Before the operation, and abdominal CT scan and ultrasonography showed incidentally an adrenal tumor with cystic component. But we left it alone at that time, because of emergency operation. Thereafter the tumor slightly enlarged in size. After close examination of radiological images and endocrinologic studies, the tumor was diagnosed as adrenal or extra-adrenal pheochromocytoma. The tumor was removed. The removed tumor was diagnosed as extra-adrenal pheochromocytoma histopathologically. No crisis occurred in the clinical course, but a high level of catecholamine was included in the cystic component.

It is necessary to consider that the high level of catecholamine might be included in the cystic pheochromocytoma even in the asymptomatic case.