

## 直腸癌に合併した無症候性傍大動脈異所性褐色細胞腫の1例

公立横手病院外科<sup>1)</sup>, 秋田大学第1外科<sup>2)</sup>, 同 第2病理<sup>3)</sup>

作左部 大<sup>1)</sup> 吉岡 浩<sup>1)</sup> 丹羽 誠<sup>1)</sup>

小棚木 均<sup>2)</sup> 浅沼 義博<sup>2)</sup> 杉田 暁大<sup>3)</sup>

褐色細胞腫と消化器癌の合併例の報告はまれである。今回、われわれは直腸癌に合併した無症候性異所性褐色細胞腫の1例を経験したので報告する。症例は60歳の女性。下腹部痛、便通異常のため受診し、大腸内視鏡検査、注腸造影検査で直腸癌と診断された。術前の腹部CT検査で下腸間膜動脈根部近傍の大動脈周囲に腫瘍を認め、リンパ節転移と診断した。術中、大動脈周囲の腫瘍摘出時に著しい高血圧と摘出後の血圧低下を認めた。術後の病理組織学的検査で直腸癌と異所性褐色細胞腫と診断された。褐色細胞腫は術前および術中に適切な血圧管理および輸液療法を行わないと危険であり、時に致命的となる。直腸癌にともなう大動脈周囲腫瘍も認めてもリンパ節転移とはかぎらず、その腫瘍の大きさや部位、第1群リンパ節腫脹の有無などからその他の原因や疾患も考慮する必要があると考えられた。

### はじめに

褐色細胞腫は全高血圧患者の0.1~0.2%を占めるといわれ、我が国では年間40~50例が手術されている<sup>1,2)</sup>。このうち、異所性褐色細胞腫は全褐色細胞腫患者の10%を占めるといわれている。しかし、現在まで褐色細胞腫と消化器癌の合併例の報告は少なく、なかでも異所性褐色細胞腫と大腸癌の合併例の報告は3例しかなく、詳細な報告がなされているのは清水ら<sup>3)</sup>の1例のみである。今回われわれは、高血圧の既往がなく、直腸癌に合併した異所性褐色細胞腫の1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

### 症 例

患者：60歳、女性

主訴：下腹部痛、便通異常

既往歴：平成6年より、てんかん、うつ病のため、内服治療中。

現病歴：平成10年11月下旬ごろから下腹部痛、便通異常が続くため、12月24日、当院を受診した。

初診時現症：身長152cm、体重75kg、血圧110/50mmHg、脈拍78/分、下腹部に軽度の圧痛を認めた。

検査所見：末梢血液検査、生化学検査では白血球の増加とCRPの高値、肝機能の軽度異常を認めた。空腹時血糖値は99mg/dlと正常範囲内であり、75gOGTT

検査でも異常を認めなかった。腫瘍マーカーはCEA 0.77ng/ml、CA19 9.01U/mlと正常範囲内であった。

大腸内視鏡検査：肛門線から約12cmの直腸S状部に全周性の3型の腫瘤を認めた(Fig. 1a)。生検にて高分化腺癌であった。

注腸造影検査：直腸S状部からS状結腸にかけてapple core signを認めた(Fig. 1b)。

腹部CT検査：明らかな肝転移は認めなかったが、下腸間膜動脈根部近傍の大動脈周囲に直径2cmの楕円形の腫瘍を認め、直腸癌のリンパ節転移を疑った(Fig. 2)。

以上より、大動脈周囲リンパ節に転移をともなう直腸癌の診断にて手術を行った。

術中所見：回腸末端と右卵巢が直腸癌と強固に癒着しており、浸潤も疑われたが、明らかな腹水、腹膜播種は認めなかった。下腸間膜動脈根部の大動脈近傍に直径2cm、表面は平滑で弾性硬な腫瘍を認めたが、その他に病変は認めなかった。根治度Bの手術が可能と判断し、D3郭清をともなう直腸前方切除術、回腸部分切除、右卵巢切除と、転移が疑われた大動脈周囲の腫瘍切除を行った。大動脈周囲の腫瘍摘出を開始したところ、収縮期血圧が200mmHgまで上昇し、心拍数は130/分の頻脈になった。手術操作を一中止し、吸入麻酔薬の濃度を上げ、塩酸ニカルジピンを1μg/kg/minで持続静注することによって収縮期血圧を140mmHgに保持できた。褐色細胞腫も疑ったが、不整脈は認めず、

Fig. 1 a) Endoscopic examination showed type 3 cancer on the rectosigmoid region  
 b) Barium enema examination showed apple core sign on the rectosigmoid

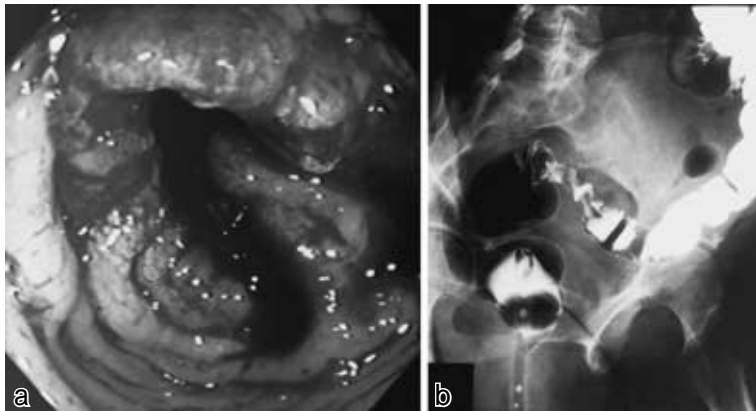


Fig. 2 Abdominal CT showed a tumor around the abdominal aorta ( arrow )

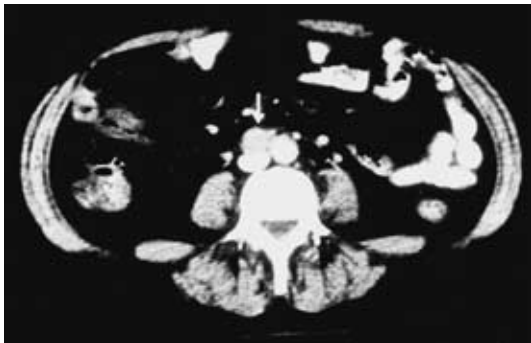
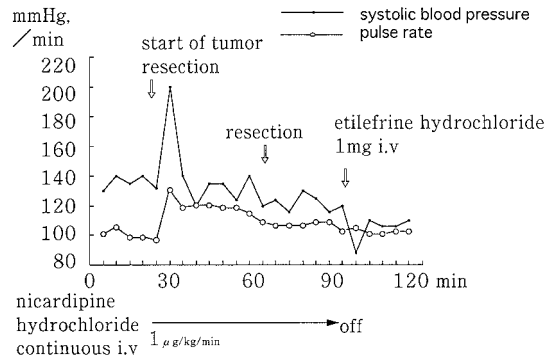


Fig. 3 Intra-operative systolic blood pressure and pulse rate



腫瘍の摘出は容易で危険性は低いと判断して手術を継続し、腫瘍を摘出した。腫瘍摘出後に収縮期血圧が一時90mmHg までに低下したが、塩酸エチレフリン1mg 静注ですぐに回復し、その後は100mmHg 程度に安定した( Fig. 3 )。術後は輸液のみで収縮期血圧は90 ~ 100 mmHg に保たれ、特に昇圧剤の投与は必要としなかった。

切除標本肉眼所見：直腸 S 状部から S 状結腸にかけて60 × 50mm の全周性の 3 型腫瘍を認めた ( Fig. 4 a )。しかし、腸管近傍に転移と判断されたリンパ節はなかった。大動脈周囲リンパ節として摘出した病変は、20 × 15 × 15mm の被膜に包まれた内部が黄色な腫瘍であった ( Fig. 4b )。

病理組織学的所見：直腸の病変は大腸癌取扱い規

約<sup>4)</sup>に従うと高分化腺癌、壁深達度 ss, ly<sub>2</sub>, v<sub>1</sub>であった。リンパ節転移は認めず、大動脈周囲リンパ節として摘出した病変は、細胞が多形的で、一部は索状に配列し、また一部では Zellballen 配列を示して増殖しており、mitosis はほとんど認められなかった( Fig. 5 )。

電顕所見：細胞質内に多数の神経分泌顆粒をみとめた ( Fig. 6 )。以上より、大動脈周囲の腫瘍は良性的褐色細胞腫と診断された。

術後経過：術後経過は良好で特に異常は認めなかった。術後に測定した血中カテコールアミン値は、アドレナリン19pg/ml、ノルアドレナリン280pg/ml、ドーパミン10pg/ml と正常範囲内であった。<sup>131</sup>I メタヨードベンジルグアナジシンチグラフィ検査でも異常集積は認めなかった。

Fig. 4 Macroscopic findings of the resected specimen

a) recto-sigmoid colon, right ovary and small intestine. b) tumor around abdominal aorta



Fig. 5 Microscopic findings (HE stain,  $\times 20$ )

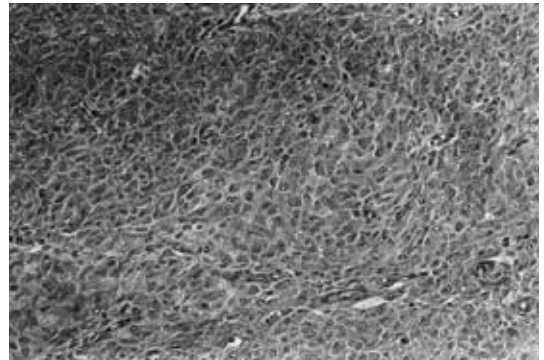
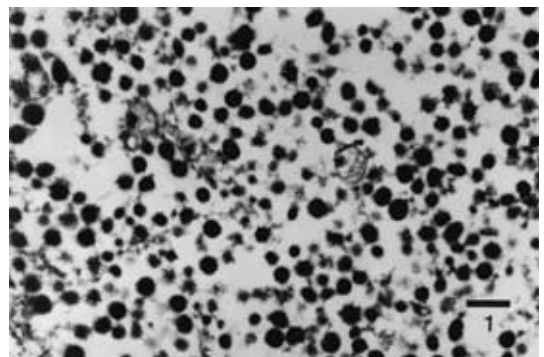


Fig. 6 Electron microscopic findings (marking, 1 $\mu$ m)



## 考 察

褐色細胞腫は、画像診断法の進歩にともない、偶然に発見される頻度が高くなり、今後増加することが予想される疾患である<sup>1)5)</sup>。性差は特になく、30～50歳代に好発するが、小児や老人にも見られる<sup>1)2)</sup>。しかし、現在まで褐色細胞腫と消化器癌の合併例の報告は少なく、大腸癌との合併例の報告は、本邦では本例を含めても10例<sup>3)6)-10)</sup>にすぎず、なかでも異所性褐色細胞腫と大腸癌の合併例の報告は本例が4例目である。

異所性褐色細胞腫は全褐色細胞腫の約10%に見られるといわれているが、Whalenら<sup>11)</sup>は成人の異所性褐色細胞腫は少なくとも全褐色細胞腫の15%はあると報告しており、本邦でも18.2%が副腎外発生例で占められており<sup>2)12)</sup>、実際にはもっと多いものと考えられる。異所性褐色細胞腫の存在部位について、Whalenら<sup>11)</sup>は87%は横隔膜以下に生じ、なかでも腎門部から腎下極、腹部大動脈分岐部までが最も多いとしており、Cirilloら<sup>13)</sup>は下腸間膜動脈の近くにその多くが存在すると報告している。本邦での集計<sup>2)13)</sup>でも腎周辺部から腹部大動脈周辺部に最も多く、今回の症例も下腸間膜動脈根

部周囲の腹部大動脈に位置しており、副腎外では最も頻度の高い部位であった。

褐色細胞腫を疑うべき症状としててんかん発作をとまなう高血圧が挙げられる<sup>14)</sup>。しかし、症状を欠く場合、さらに、それが異所性褐色細胞腫である場合には術前診断は極めて困難である。われわれの症例では、高血圧の既往がなく、また、進行直腸癌に合併していたために、大動脈周囲の腫瘍を転移リンパ節と術前および術中診断した。しかし、retrospectiveに考察すると、1)第1群や第2群に明らかなリンパ節転移を認めず大動脈周囲にのみ転移ありと診断したこと、2)腫瘍長径が2cmとリンパ節にしては巨大であることなどから、リンパ節転移とは異なる腫瘍である可能性を考慮すべきであったと反省させられる。

術中に予想外の異所性褐色細胞腫に遭遇した場合は極めて困難な状況に陥る。清水ら<sup>3)</sup>は、上行結腸癌に合併した腎動脈分岐部周囲の腫瘍を転移リンパ節と術前診断して手術を行ったため、腫瘍切除開始から著しい

血圧の上昇，頻脈，心室性期外収縮を認め，リドカイン静注，塩酸ニカルジピンなどを持続静注しながら腫瘍を摘出し，腫瘍摘出後は収縮期血圧が70mmHgまで低下したため，塩酸ドパミン持続投与にて血圧を維持した症例を報告している．われわれも，腫瘍摘出術や摘出後に著しい血圧の変動を認めたが，幸いにも特に合併症なく経過することができた．術前診断未確定の腫瘍摘出に際して，著しい血圧の変動を認めた場合には，褐色細胞腫を疑って操作を一時中止し，麻酔医と相談の上，薬剤などによる血圧，脈拍の安定を待ってから，また，腫瘍摘出後の血圧低下にも留意しつつ，愛護的操作で腫瘍を摘出する必要がある．

直腸癌にともなう大動脈周囲の腫瘍を認めても，リンパ節の腫脹とはかぎらず，既往歴もよく検討し，その他の原因や疾患も考慮して検索しておく必要があると考えられた．

#### 文 献

- 1) 佐藤辰男：褐色細胞腫．内分泌症候群 関連内分泌病を含めて 上巻．別冊 日本臨牀．日本臨牀社，大阪，1993，p431-434
- 2) 竹田亮祐，宮森 勇，安原修一郎ほか：褐色細胞腫の全国集計および第3期ステロイドホルモン産生異常症の全国集計について『副腎ホルモン産生異常症』調査研究班昭和60年度研究報告書．1986，p6-26
- 3) 清水可方，朝倉美香，永井利恵ほか：術中に遭遇した異所性褐色細胞腫の1例．臨麻 22：1169-1170，1998
- 4) 大腸癌研究会編：大腸癌取扱い規約．改訂第6版．金原出版，東京，1998
- 5) 渡辺 決，斎藤雅人，小島宗門：副腎偶発腫瘍の手術適応．ホルモンと臨 44：27-33，1996
- 6) 伊藤英人，宇都宮勝之，村山道典ほか：S状結腸癌の手術を契機に発見された褐色細胞腫の1例．外科治療 77：244-248，1997
- 7) 上地 富，西川幸宏，中川陽子ほか：上行結腸癌と褐色細胞腫の一期的切除術の麻酔経験．日臨麻会誌 16：301，1996
- 8) 買原彰彦，森近俊彦，山本 修ほか：褐色細胞腫を合併した結腸癌の1例．日臨外医会誌 57：331，1996
- 9) 木村彰良，奥田康一，杉岡 篤ほか：褐色細胞腫に合併した直腸癌の1例．日臨外医会誌 51：2103，1990
- 10) 根本明喜，東口高志，横井 一ほか：副腎動脈塞栓術後左副腎褐色細胞腫，胃癌，直腸癌の三重複癌を一期的に切除した1例．内分秘外科 7：143-147，1990
- 11) Whalen RK, Althausen AF, Daniels GH: Extra-adrenal pheochromocytoma. J Urol 147: 1-10, 1992
- 12) 佐藤辰男：副腎外褐色細胞腫．内分泌症候群 関連内分泌病を含めて 上巻．別冊 日本臨牀．日本臨牀社，大阪，1993，p526-529
- 13) Cirillo RL Jr, Bennett WF, Vitellas KM et al: Pathology of the adrenal gland. Am J Roentgenol 170: 429-435, 1998
- 14) 井村裕夫：内分泌学．金芳堂，京都，1988，p373-381

A Case of Asymptomatic Extra-adrenal Pheochromocytoma  
Associated with Rectal Cancer

Masaru Sakusabe<sup>1)</sup>, Hiroshi Yoshioka<sup>1)</sup>, Makoto Niwa<sup>1)</sup>, Hitoshi Kotanagi<sup>2)</sup>,  
Yoshihiro Asanuma<sup>2)</sup> and Akihiro Sugita<sup>3)</sup>

Department of Surgery, Yokote Municipal Hospital<sup>1)</sup>  
First Department of Surgery<sup>2)</sup> and Second Department of Pathology<sup>3)</sup>,  
Akita University School of Medicine

There has been few reports of gastrointestinal carcinoma associated with pheochromocytoma. We report a case with rectal cancer complicated by asymptomatic extra-adrenal pheochromocytoma. The patient, a 60-year-old female, suffering from lower abdominal pain and impaired bowel movement was diagnosed as rectal cancer based on findings of colonoscopy and barium enema. A preoperative abdominal CT revealed a para-aortic mass, located at the branch of the inferior mesenteric artery, and it was diagnosed as a lymph-node metastasis. At surgery, significant hypertension occurred while the para-aortic tumor was being resected, and followed by hypotension after resection. Postoperative histopathological studies were consistent with rectal cancer and extra-adrenal pheochromocytoma. Without adequate pre- and intraoperative blood-pressure management and infusion therapy, pheochromocytoma may be fatal in some cases. Since a para-aortic mass in patients with rectal cancer is not always a lymph-node metastasis, the tumor size and location, as well as any enlargement of the Group 1 lymph nodes, should be evaluated to determine other possible causes of the mass.

Key words : extra-adrenal pheochromocytoma, rectal cancer

[ Jpn J Gastroenterol Surg 33 : 1534 - 1538, 2000 ]

Reprint requests : Masaru Sakusabe Department of Surgery, Akita Red Cross Hospital  
222 1 Naeshirosawa-aza Saruta, Kamikitade, Akita-City, 010 1495 JAPAN

---