

症例報告

S 状結腸癌副腎転移との鑑別に難渋した副腎原発腺腫様腫瘍の 1 例

静岡県立静岡がんセンター大腸外科, 同 消化器外科¹⁾, 同 画像診断科²⁾, 同 病理診断科³⁾

塩見 明生 絹笠 祐介 齊藤 修治
橋本 洋右 富岡 寛行 上坂 克彦¹⁾
寺島 雅典¹⁾ 朝倉 弘郁²⁾ 佐々木恵子³⁾

症例は 65 歳の男性で、貧血の精査で S 状結腸癌とともに、左副腎に 3cm 大の境界明瞭な充実性腫瘍を認めた。副腎腫瘍は造影 CT で後期相まで造影効果が遷延し、MRI で T1 強調・T2 強調画像ともに等信号を呈した。また、positron emission tomography/computed tomography で異常集積を認めた。以上から、S 状結腸癌および副腎転移と診断し、S 状結腸切除および左副腎摘出を施行した。副腎腫瘍の病理組織学的検査結果は、扁平～立方状の腫瘍細胞が大小の管腔を形成しており、免疫組織学的に AE1/AE3 (+), Calretinin (+), Vimentin (+), CD31 (-), D2-40 (-), S-100 蛋白 (-) の中皮由来腫瘍で、副腎原発腺腫様腫瘍と診断した。副腎原発腺腫様腫瘍はまれで、28 例の報告があるが、その画像的特徴を詳細に述べた報告は過去 1 編のみである。

はじめに

腺腫様腫瘍 (adenomatoid tumor ; 以下、AT) は、通常、生殖器系臓器に生じる中皮細胞由来の良性腫瘍である。女性の子宮・卵巣、男性の精巣上体・精索に生じることが多い良性腫瘍である。しかし、副腎原発の AT はまれな疾患で、検索したかぎりでは 28 例の症例報告があるが^{1)~4)}、その画像的特徴を詳細に述べた報告は 1 編のみである³⁾。今回、我々は S 状結腸癌の副腎転移と術前鑑別できなかった副腎原発 AT を経験したので、その画像診断的特徴とともに文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：65 歳、男性

主訴：特になし。

既往歴：高血圧症にて降圧薬内服。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：2008 年 2 月、高血圧症で通院中の近医で貧血・便潜血検査陽性を指摘され、大腸内視鏡

検査で S 状結腸癌と診断された。

入院時現症：血圧 136/80mmHg、脈拍 76 回/分、整。

眼瞼結膜に明らかな貧血は認めず。腹部は平坦・軟で腫瘍触知せず。

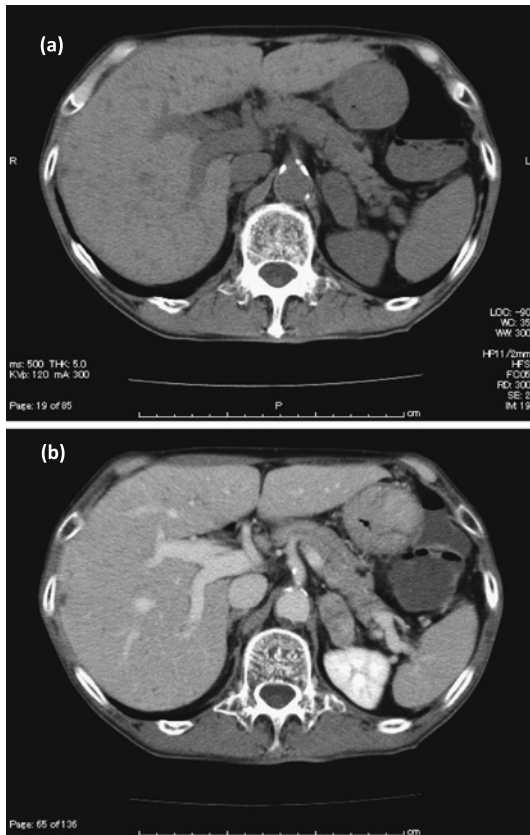
初診時血液尿検査所見：Hb = 11.3g/dl HCT = 35.4% MCV = 74.8fl MCH = 23.9pg MCHC = 31.9% と正球性正色素性貧血を認めた。腫瘍マーカーは CEA = 41.4ng/ml CA19-9 = 85U/ml と高値を示した。血中コルチゾール、レニン活性、尿中カテコラミン (アドレナリン、ノルアドレナリン、ドーパミン) 排泄量、尿中 17-KS, 17-OHCS はすべて正常範囲であった。その他、血液生化学的異常は認めなかった。

大腸内視鏡検査所見：S 状結腸に全周性の立ち上がり明瞭な周堤隆起を伴う潰瘍性病変を認める。肉眼型 2 型 S 状結腸癌。生検では高分化腺癌と診断。

胸部から骨盤造影 CT 所見：CT は Aquilion 16 DAS (Toshiba) を用い単純、造影条件 (造影後 120 秒) を撮影した。S 状結腸癌原発部位に一致して造影効果を有する全周性壁肥厚を認める。周囲への

<2009 年 9 月 16 日受理>別刷請求先：塩見 明生
〒411-8777 駿東郡長泉町下長窪 1007 静岡県立静岡がんセンター大腸外科

Fig. 1 Abdominal computed tomography (CT)
 a: Abdominal CT showed a solid mass 3cm in diameter on left adrenal gland. Unenhanced CT revealed adrenal tumor without calcification (HU=27). b: The adrenal tumor was enhanced heterogeneously on delayed (120 sec) contrast imaging (HU=99.6).



浸潤はなく深達度 cSS. 腫瘍周囲に直径 1cm の腫大リンパ節が 2 個存在し cN1. 肺転移や肝転移を認めない. 左副腎に直径 3cm の類円形・境界明瞭な腫瘍を認める. 単純 CT で石灰化を伴わず, CT 値は HU=27. 造影 CT で腫瘍は不均一に淡く造影された (CT 値は HU=99.6) (Fig. 1).

副腎 MRI 所見: MRI は Gyroscan Intera 1.5T Master (Philips) を用い, T1 強調像 (FFE 法), T2 強調像 (Single shot 法), 4 相ダイナミック造影 (単純, 30, 90, 180 秒後), 造影後脂肪抑制 T1 強調像 (FFE 法) を撮像した. 左副腎に 2.9×1.4×3.0cm の境界明瞭, 辺縁整な腫瘍を認めた. 腫瘍は

充実性で嚢胞成分は有さなかった. T1 強調像にて脾臓と等信号を呈した. T2 強調像では, ほぼ均一な脾臓と等信号な腫瘍の中に一部点状の高信号領域を認めた. T1 chemical shift imaging で信号低下がみられず, 脂肪成分を含まない腫瘍であった. ダイナミック造影 MRI では早期相からほぼ均一な造影効果を有し, 後期相でもこの造影効果が遷延していた. 腫瘍内部に変性・壊死を思わせる所見はなかった (Fig. 2).

18F-fluorodeoxyglucose positron emission tomography/computed tomography (FDG-PET/CT) 所見: S 状結腸の原発巣に一致して強い FDG 集積を認めた (SUVmax=22.46). 左副腎にも肝臓より強い異常集積を認め, SUVmax=3.63 であった (Fig. 3).

以上より, 大腸癌取扱い規約第 7 版によると S, 2 型, cSS, cN1, cH0, cP0, cM1 (左副腎), cStageIV と診断した.

2008 年 5 月 S 状結腸切除, D3 リンパ節郭清, 左副腎摘出術を施行した. 副腎転移も完全切除したと考え, 肉眼的根治度 B とした.

切除標本肉眼検査所見: 原発腫瘍は S 状結腸に存在する 7×4cm の 2 型病変. 左副腎腫瘍は 3×3cm の境界不明瞭な弾性軟の充実性腫瘍. 被膜形成は認めない. 滑面は灰白色を呈した.

病理組織学的検査所見: S 状結腸: 大小不整な腺管の浸潤性増殖が主体である. 腫瘍は固有筋層を超えて腸管周囲脂肪織まで浸潤を認めるものの明らかな漿膜浸潤は認めない (Fig. 4).

左副腎: 扁平～立方上の腫瘍細胞が大小の管腔を形成して増殖している. 腫瘍細胞には核異型や核分裂像を認めない. これらの腫瘍細胞は免疫組織学的には, AE1/AE3 (+), Calretinin (+), Vimentin (+), CD31 (-), D2-40 (-), S-100 蛋白 (-) であり, 中皮由来と診断される. よって, 副腎原発 AT と診断した (Fig. 5).

以上から, 最終診断は S 状結腸癌, Type2, 7×4cm, tub2, pSS, int, INFβ, ly0 (D2-40), v1 (EVG), pN0(0/40), sH0, sP0, pM0, fStageII, 根治度 A であった.

術後は順調に経過した. 術後補助化学療法は行

Fig. 2 Magnetic resonance imaging(MRI)of the adrenal gland

The adrenal tumor appeared homogeneously isointense to the spleen on T1WI (a), and T2WI (b). c : After contrast administration, the tumor presented marked enhancement.

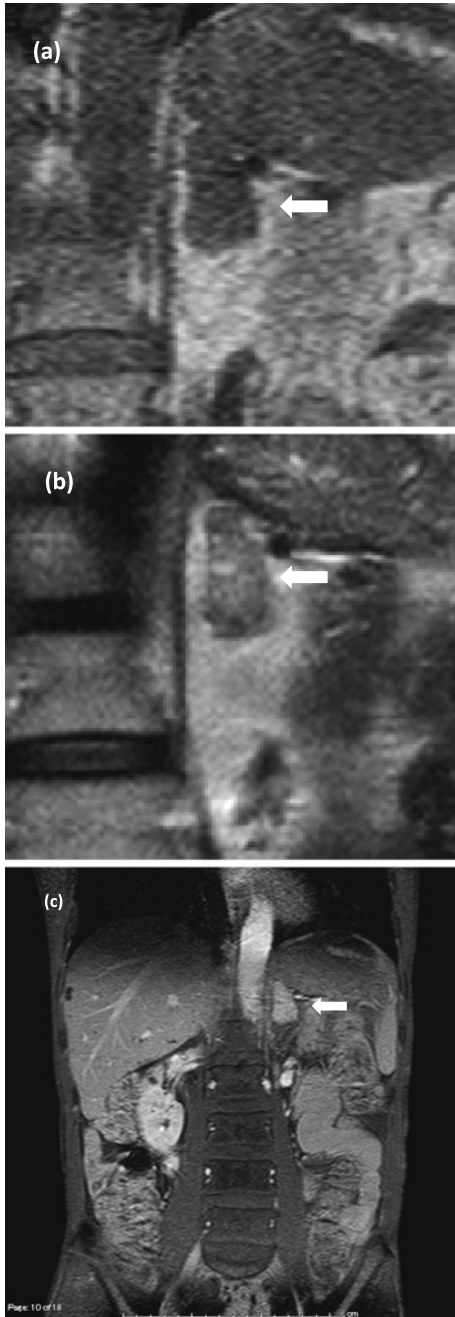


Fig. 3 18F-fluorodeoxyglucose positron emission tomography/computed tomography (FDG-PET/CT)

a : Marked FDG uptake was shown on sigmoid colon (white arrow. SUVmax = 22.46). b: Simultaneously, abnormal FDG uptake was shown on left adrenal gland (black arrow. SUVmax = 3.63).

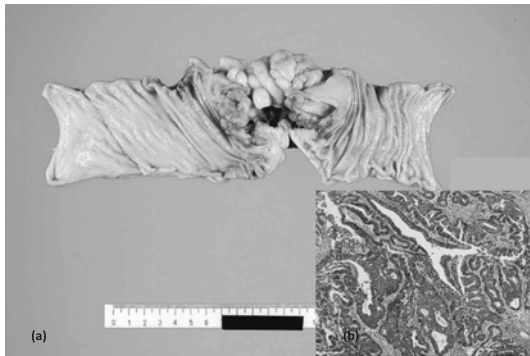


わず、現在再発なく経過している。

考 察

ATは通常、生殖系臓器に生じる中皮細胞由来の良性腫瘍である。女性の子宮・卵巣に、男性の精巣上体・精索に発生する代表的な良性腫瘍である。生殖系臓器以外では、小腸間膜・大網・後腹膜などで発生が報告されている。しかし、副腎原発のATは非常にまれで、医学中央雑誌およびPubMedを用いて、1983年から2008年の検索期間に、「腺腫様腫瘍」、「adenomatoid tumor」のキー

Fig. 4 a : The resected specimen of sigmoid colon showed an ulcerated tumor with clear margin. b : Histological examination of this tumor showed moderately differentiated adenocarcinoma.



ワードで検索したかぎりでは28例の報告があるのみであった^{1)~4)}。

ATは、組織学的には扁平・立方上、ないし円柱状の一見上皮または中皮様腫瘍細胞が、大小不同・不規則な腺管構造を形成して増殖する。核異型や核分裂像は認めない。免疫組織化学的にはケラチン陽性、カルレチニン陽性であり、この腫瘍細胞は中皮由来であることが示される⁵⁾。

副腎原発ATの大半は無症状で、他疾患の画像検査時や剖検時に偶然見つかることが多い。櫻田ら⁶⁾は副腎原発ATの17例を検討し、男性に多く、患者年齢は24~66歳(平均年齢43.4歳)、発生部位に左右差はないとしている。組織学的にはリンパ管腫、脂肪線維腫、転移性腺癌などの鑑別が必要としている。

予後に関しては副腎原発ATが良性疾患であることから、再発や転移の報告はない。Travisら⁴⁾は副腎ATが浸潤性辺縁を有することがあるが、悪性腫瘍と判断しないように注意すべきであるとされている。

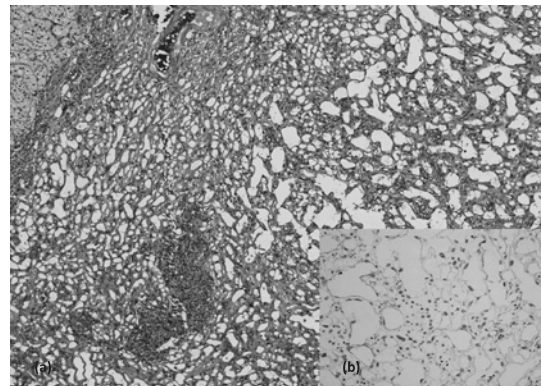
本例はD2-40(-)、CD31(-)であることからリンパ管腫は否定し、HE染色、免疫染色検査の所見から副腎原発のATであると診断した。

さて、近年CT・MRI・PET-CTなど画像診断にて偶然発見される、いわゆる副腎偶発腫の増加とともに、大腸癌副腎転移発見率は増加している。

Murakamiら⁷⁾は悪性腫瘍の副腎転移の頻度は、

Fig. 5 Histology of adenomatoid tumor of the adrenal gland

a : The tumor was composed of small and irregular tubules, lined by flattened cells (Hematoxylin-Eosin staining). b : Immunostaining of the tumor cells. The tumor cells showed positive cytoplasmic reaction for calretinin.



悪性腫瘍患者剖検例の8.6~27.0%であり、結腸・直腸癌からの転移は1.9~17.4%であるとしている。また、奥山ら⁸⁾は担癌患者の副腎腫瘍のうち27~36%程度が悪性病変であると報告している。したがって、大腸癌患者に発見された非機能性副腎腫瘍には、副腎転移の可能性も十分考慮すべきである。

大腸癌の副腎転移は発見時にすでに他の遠隔転移を有することが多い。しかし、孤立性副腎転移の場合には切除による良好な治療成績も示されており⁹⁾¹⁰⁾、大腸がん治療ガイドラインでも切除可能な場合は切除を考慮するとしている。

今回、我々は原発性S状結腸癌の同時性副腎転移と考え、同時切除を行った。結果的には非常にまれな副腎原発ATであったが、このATが転移性腫瘍をはじめとする他の副腎腫瘍と術前に鑑別可能であるかが重要である(Table 1)。

ところが、副腎原発ATの画像所見を詳細に記載した報告は過去に1編存在するのみである³⁾。Rodrigoら³⁾は自験例のMRI所見を、充実成分と嚢胞成分が混在した8cm大の腫瘍でT1・T2強調画像で腫瘍充実部分は脾臓と等信号であり、T1 chemical shift imagingで脂肪成分を含まない腫

Table 1 Comparison of image findings between adrenal metastasis and adenomatoid tumor (this case)

	Shape	CT (nonenhanced)	CT (enhanced)	MRI	PET/CT
Adrenal metastasis	Round/ Irregular margin	Heterogeneous or homogeneous	<ul style="list-style-type: none"> Enhanced heterogeneously in delayed phase Various findings (bleeding, necrosis) 	<ul style="list-style-type: none"> No signal loss in chemical shift imaging. Marked enhancement on delayed phase. Various findings (bleeding, necrosis) 	Increased FDG uptake
Adenomatoid tumor (This case)	Round/ Sharply marginated	Homogeneous	Enhanced heterogeneously in delayed phase	<ul style="list-style-type: none"> No signal loss in chemical shift imaging. Enhanced until delayed phase. 	Increased FDG uptake

瘍であったと報告している。ガドリニウム造影検査で腫瘍部分は著明に造影された。これらは、我々の症例とも共通しているところである。そのうえで、彼らも術前には副腎癌もしくは褐色細胞腫、転移性腫瘍と診断しており、実際術前にATを診断することは極めて困難であると述べている。

副腎原発ATのPET-CT所見の報告はなく、本例が最初の報告である。本例ではSUVmax = 3.63の異常集積を認めた。

一方、副腎転移の画像所見は数多く報告され、一般的には悪性腫瘍の既往を有し、辺縁不正かつ内部に変性や壊死を伴う腫瘍の場合には転移性腫瘍を疑うとされる。造影CTで造影効果が遷延することが特徴である。一般に、腺腫などの良性腫瘍では早期に造影剤がwash outされる。褐色細胞腫は造影にて強く濃染する点で鑑別されることが多い。副腎転移はMRIのchemical shift imagingで信号低下を認めず、これは内部に脂肪を含むため信号低下を示す腺腫との重要な鑑別点となる。ダイナミックMRIでは後期相でも造影効果が遷延する。副腎転移はPET-CTでさまざまな程度のFDG集積を伴うとされていて、Blakeら¹¹⁾は病変部のSUVが肝臓のSUVの2倍以上であれば転移性腫瘍の可能性が高いと報告している。

日常診療で遭遇する副腎偶発腫としては、腺腫、副腎癌、転移性腫瘍、褐色細胞腫、神経節腫、骨髄脂肪腫、嚢腫などがあげられる⁸⁾。神経節腫は単純CTで筋肉より低信号を呈し、造影CTでほと

んど造影効果を示さず骨格筋よりも低吸収域を呈するのが特徴とされるため除外した。骨髄脂肪腫は通常、MRIで脂肪成分を認めるため除外した。また、本例は嚢胞成分を有さないことから嚢腫とも容易に鑑別された。本例はCT・MRIで腫瘍内部に壊死を伴わないところが転移として非典型的であったが、先述の副腎転移の画像所見と多くの共通点を有し、さらにPET-CTで異常集積を伴ったため転移を否定できなかった。臨床経過からも転移性腫瘍を否定しえない以上、組織診断的意味を兼ねた副腎切除は許容されると判断した。副腎腫瘍の確定診断に経皮生検の有用性を示した報告もあるが¹²⁾、本例は同一術野で同時切除できる腫瘍であり、術前経皮生検は考慮しなかった。

大腸癌副腎転移が決してまれではなく、切除による良好な成績も示されていることから、同時性副腎腫瘍で完全に良性腫瘍と判断できる場合を除いては、切除に伴うRisk-Benefit balanceを考慮して、切除は許容されると考える。この中で、副腎原発ATというまれな良性腫瘍を経験したが、副腎原発ATは、画像上、副腎転移と多くの共通点を有する疾患である可能性がある。しかし、PET-CT所見はもちろんのこと、いまだその画像的特徴の報告例が少ないため、術前に副腎転移と鑑別することが極めて困難である。よって今回、我々は詳細なCT、MRI、PET-CTの特徴を含めて報告した。

文 献

- 1) Hoffmann M, Yedibela S, Dimmler A et al : Adenomatoid tumor of the adrenal gland mimicking an echinococcus cyst of the liver—a case report. *Int J Surg* **6** : 485—487, 2008
- 2) Hamamatsu A, Arai T, Iwamoto M et al : Adenomatoid tumor of the adrenal gland : case report with immunohistochemical study. *Pathol Int* **55** : 665—669, 2005
- 3) Rodrigo Gasque C, Marti-Bonmati L, Dosda R et al : MR imaging of a case of adenomatoid tumor of the adrenal gland. *Eur Radiol* **9** : 552—554, 1999
- 4) Travis WD, Lack EE, Azumi N et al : Adenomatoid tumor of the adrenal gland with ultrastructural and immunohistochemical demonstration of a mesothelial origin. *Arch Pathol Lab Med* **114** : 722—724, 1990
- 5) 森永正二郎：精巢・付属器。向井 清，真鍋俊明，深山正久編。外科病理学。第4版。文光堂，東京，2006，p985
- 6) 櫻田潤子，梅津 哉，内藤 眞：副腎原発腺腫様腫瘍の1例。診断病理 **21** : 73—75, 2004
- 7) Murakami S, Terakado M, Hashimoto T et al : Adrenal metastasis from rectal cancer : report of a case. *Surg Today* **33** : 126—130, 2003
- 8) 奥山智緒，牛嶋 陽，西村恒彦：副腎疾患における核医学検査の意義。画像診断 **26** : 1228—1241, 2006
- 9) 徳原孝哉，網岡勝見，岩本充彦ほか：異字性孤立性副腎転移をきたした上行結腸癌の1例。日臨外会誌 **63** : 2747—2751, 2002
- 10) Katayama A, Mafune K, Makuuchi M : Adrenalectomy for solitary adrenal metastasis from colorectal carcinoma. *Jpn J Clin Oncol* **30** : 414—416, 2000
- 11) Blake MA, Slattey JM, Kalra MK et al : Adrenal lesions : characterization with fused PET/CT image in patients with proved or suspected malignancy—initial experience. *Radiology* **238** : 970—977, 2006
- 12) Candel AG, Gattuso P, Reyes CV et al : Fine-needle aspiration biopsy of adrenal masses in patients with extraadrenal malignancy. *Surgery* **114** : 1132—1137, 1993

**A Case Report of Adenomatoid Tumor of the Adrenal Gland Mimicking
an Adrenal Metastasis from Sigmoid Colon Cancer**

Akio Shiomi, Yusuke Kinugasa, Syuji Saito,
Yousuke Hashimoto, Hiroyuki Tomioka, Katsuhiko Uesaka¹⁾,
Masanori Terashima¹⁾, Kouiku Asakura²⁾ and Keiko Sasaki³⁾
Division of Colorectal Surgery, Division of Surgery¹⁾, Division of Radiology²⁾ and Division of Pathology³⁾,
Shizuoka Cancer Center Hospital

Adenomatoid tumors (AT) of the adrenal gland are rare, benign, asymptomatic neoplasms usually found incidentally. We report a 65-year-old man diagnosed with an adenomatoid tumor of the adrenal gland mimicking adrenal metastasis from sigmoid colon cancer. The man was originally diagnosed with sigmoid colon cancer with a simultaneous left adrenal solid tumor 3cm in diameter in preoperative imaging. The tumor was gradually enhanced on dynamic computed tomography (CT). The tumor showed isointensity on T1WI and T2WI in magnetic resonance imaging (MRI), and showed abnormal FDG uptake in PET/CT. We diagnosed sigmoid colon cancer and simultaneous adrenal metastasis preoperatively, conducting sigmoidectomy with lymphadenectomy and left adrenalectomy. Histologically, the tumor had the typical appearance of AT of the genital tract. Immunohistochemically, tumor cells were positive for calretinin, AE1/AE3, and vimentin and negative for endothelial markers CD31, D2-40, and S-100 protein, confirming AT of the adrenal gland a very rare tumor for which only 28 cases have been reported in the English literature.

Key words : adenomatoid tumor, adrenal metastasis, colon cancer

[*Jpn J Gastroenterol Surg* 43 : 472—478, 2010]

Reprint requests : Akio Shiomi Division of Colorectal Surgery, Shizuoka Cancer Center Hospital
1007 Shimonagakubo, Nagaizumi, Sunto, 411-8777 JAPAN

Accepted : September 16, 2009