

## 早期胃癌術後の定期検査で偶然発見 された副腎原発悪性リンパ腫の1例

あみ さき まさ たか まつ ぼら たけし  
網 崎 正 孝<sup>1)</sup> 松 原 毅<sup>2)</sup>  
く もり こう じ つぐ  
久 守 孝 司<sup>2)</sup> 田 島 よし 証<sup>2)</sup>

キーワード：副腎悪性リンパ腫，副腎偶発腫瘍

### 要 旨

副腎偶発腫として発覚した悪性リンパ腫の1例を報告する。症例は75歳の男性。早期胃癌に対する術後6年目のスクリーニングCT検査で初めて右副腎に径3cm大の腫瘍を指摘された。PET検査で右副腎および大動脈周囲リンパ節に高集積を認め、副腎原発腫瘍の診断で右副腎摘出術および大動脈周囲リンパ節サンプリングを施行した。その結果、いずれも病理組織学的にホジキンリンパ腫（混合細胞型）と診断された。副腎悪性リンパ腫は稀な疾患であるが、その治療には正確な病理診断が要求される。副腎の偶発腫瘍を発見した場合、副腎悪性リンパ腫も念頭にいれ、リンパ節生検等を含めた検索が必要と考える。

### はじめに

画像診断技術の向上に伴い、偶発に発見される副腎原発腫瘍が増加している。今回われわれは、早期胃癌術後の定期検査にて発見された極めてまれな片側性副腎悪性リンパ腫の1例を経験したので報告する。

### 症 例

症例：75歳，男性

主訴：特になし

既往歴：65歳時に早期胃癌（pStage IA）で幽門側胃切除術を施行される。

現病歴：胃切除後、定期的に外来を受診していた。1年前の定期外来診察の際に施行された腹部CT検査では異常を認めなかったが、本年の腹部CTで右副腎の腫大を認め、精査加療目的に当科紹介となった。

身体所見：身長168cm，体重53.0kg。表在リンパ節は触知せず。そのほか特記すべき所見を認めなかった。

入院時血液生化学的検査所見：ヘモグロビン9.8mg/dl，血小板11.7万/ $\mu$ lと軽度の貧血と血小板減少を認めたが、副腎内分泌検査値ならびに腫瘍マーカーはすべて正常であった。

Masataka AMISAKI et al.

1) 島根大学医学部卒後臨床研修センター

2) 同 消化器・総合外科

連絡先：〒693-8501 出雲市塩冶町89-1

腹部造影 CT 検査：右副腎に境界明瞭で均一に造影される径 30×20 mm 大の腫瘍を認め、CT 値は 44 Hounsfield units (HU) であった。付近の傍大動脈リンパ節 1 つに長径 13 mm の橢円形腫大を認めた。胃癌術後部位に再発を思わせる所見は認めなかった (図 1 A,B)。

腹部造影 MRI 検査：右副腎は 24 mm 大に腫大し、拡散強調画像 (DWI) で高信号を呈し、ガドリニウム造影で濃染された (図 1 C,D)。

MIBG シンチ検査：早期相で有意な集積はなく、後期相でも異常集積や左右差を認めなかった。

PET-CT 検査：早期相で腫大した右副腎に集積亢進を認め (SUV<sub>max</sub>=5.21)、後期相で集積は増強していた (SUV<sub>max</sub>=6.55)。傍大動脈リンパ節の 1 つに集積を認めた (図 2)。

消化管内視鏡検査：上部消化管に異常所見はなく、下部消化管内視鏡検査で盲腸と横行結腸に憩室を

認めた。

入院後経過：CT 所見で CT 値の高い high density として描出される径 2 から 3 cm の副腎腫瘍を認め、同部位に FDG-PET の取り込み増加を認めたことより、副腎原発悪性腫瘍と判断し、開腹下の右副腎摘出術および大動脈周囲リンパ節のサンプリング郭清を施行した。

手術所見：腹腔内を観察すると、胃癌の再発を疑うような播種結節などは認めなかった。右副腎に径 3 cm 大の弾性硬の腫瘤を触知し、傍大動脈リンパ節には軽度の腫脹を認めた。右副腎摘出、および 16a2 リンパ節摘出術を行った。

病理組織学的所見：副腎に 37×35×30 mm 大の境界明瞭な充実性腫瘍を認めた (図 3 A)。組織学的には、種々の炎症性細胞を背景に持つ病変で、その中に核小体の目立つ大型の異型細胞が散見された (図 3 B)。免疫組織学的に、これらの細胞

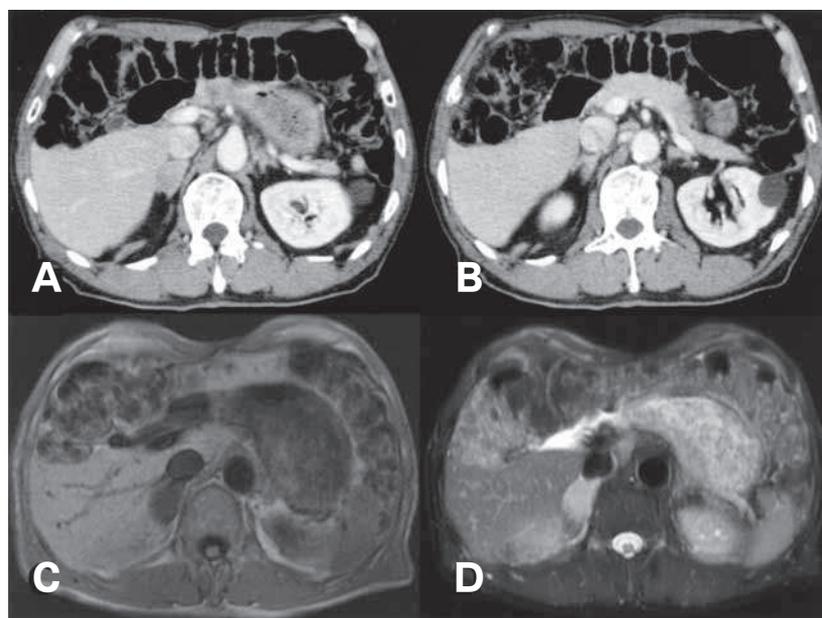


図 1 腹部 CT および MRI 検査

腹部造影 CT 検査で右副腎に辺縁整、境界明瞭、内部均一な 30×23 mm 大の腫瘍を認め、周囲被膜にはやや強い造影効果を認めた (A)。腫大した傍大動脈リンパ節も軽度の造影効果を認めた (B)。腹部造影 MRI 検査では右副腎の腫瘍性病変は T1 強調画像で低信号域として (C)、T2 強調画像で高信号域として描出された (D)。

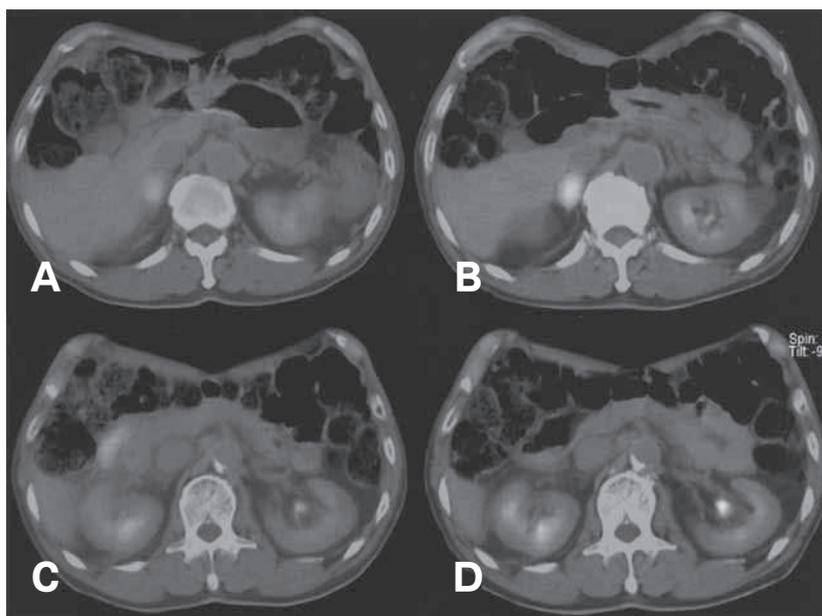


図2 PET-CT 検査

- A : 早期相で右副腎の集積亢進を認めた。  
 B : 後期相での集積はさらに亢進していた。  
 C : 腫大した大動脈周囲リンパ節 1 個にも軽度の集積亢進を認めた。  
 D : 後期相でも同リンパ節に集積亢進を認めた。

は CD 30, CD 15 陽性で (図 4 A, B), B 細胞のマーカーである CD 20, CD 79 a は陰性であるが, PAX 5 は淡く陽性であった (図 4 C)。また, EBER も陽性であった (図 4 D)。よってホジキンリンパ腫 (混合細胞型) と診断した。

術後経過：術後経過は良好で術後10日目に退院となった。その後、血液内科にて Adriamycin, bleomycin, vinblastine, dacarbazine の 4 剤による ABVD 療法が導入され、術後 6 か月が経過した現在、再発所見なく観察中である。

### 考 察

副腎疾患と関係ない疾患の検査または健康診断の際に、画像検査で予期せず見つかった、径 1 cm 以上の副腎腫瘤を副腎偶発腫 (adrenal incidentaloma) と呼ぶ。副腎偶発腫のほとんどは良性・非機能性である。悪性は 5 % 前後で、極

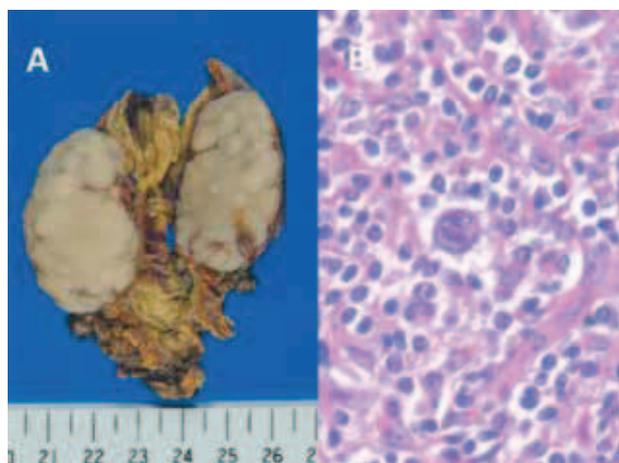


図3

- A : 摘出標本断面 被膜に包まれた 37×35×30 mm 大の充実性腫瘤を認めた。  
 B : HE 染色にて腫瘍内部には大型で核小体の目立つ細胞が認められた。一部に、2 核の大型細胞も認めた。

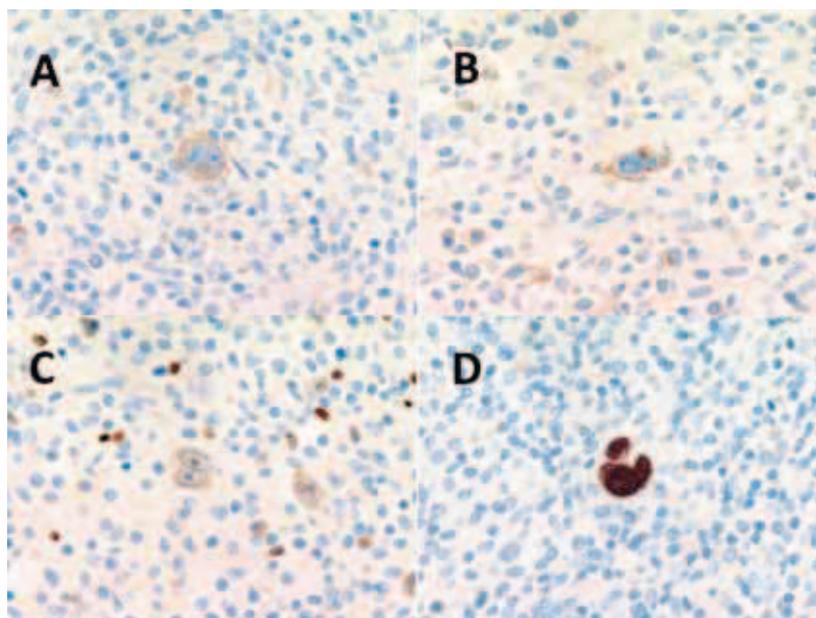


図4

- A : CD30 染色。腫瘍内に CD30 陽性細胞を認めた。  
 B : CD15 染色。腫瘍内に CD15 陽性細胞を認めた。  
 C : PAX5 染色。腫瘍細胞は淡く染色された。  
 D : EBER 染色。腫瘍細胞は強い染色を認めた。

めて稀とされている<sup>1,2)</sup>。

副腎偶発悪性腫瘍の鑑別診断としては今回の副腎原発リンパ腫 (primary adrenal lymphoma; PAL) のほか、副腎皮質癌、悪性褐色細胞腫があるが、PAL は我々が検索し得た限り1961年から2006年でわずか116例の英文報告がみられるのみであった。さらに、副腎悪性リンパ腫の組織型としてはびまん性大細胞型 B 細胞性リンパ腫が80%以上と最も多く、NK/T cell などの報告もあるがそのほとんどが非ホジキンリンパ腫で、ホジキンリンパ腫の報告は検索し得た限り認められなかった。PAL の発症平均年齢は68歳で、男女比は3対1と男性に多い。本症例のような片側性病変は少なく、70%は両側副腎に病変を認めるとされる<sup>3)</sup>。無症状のまま偶発的に発見される場合や、悪性リンパ腫の主兆候である B 症状 (発熱、体重減少、盗汗)、また mass effect により正常副腎

が圧排され副腎不全を認めることがある。

元来、副腎にはリンパ組織はないため病因については議論のあるところであるが、現在最も有力な説の一つに homing theory がある<sup>4,5)</sup>。これは、自己免疫性副腎炎により造血組織が副腎に定着し、さらに病側から対側副腎へ炎症が波及することによって両側性に造血組織が定着し、両側性の悪性リンパ腫を呈すると言うものである。

副腎悪性リンパ腫の治療は各々の組織型に応じた多剤併用化学療法、放射線療法、あるいはこれらの併用療法を行うのが一般的である。本症例は右副腎に高い CT 値を有し、PET-CT で集積亢進を伴う腫瘤を認め、悪性腫瘍を考慮して副腎摘出術を施行した。片側性の副腎偶発腫で、ホルモン活性はなく、長径 3 cm、CT 値 44 HU であり、海外のガイドラインでは副腎摘出術が推奨される所見であった<sup>8-10)</sup>。結果的には PAL と診断され、

組織型は Hodgkin リンパ腫であった。術前検査所見を見直すと、MRI の信号パターンは T1 で low~isointensity であり、T1 で hyperintensity を呈する副腎皮質癌よりもむしろ悪性リンパ腫の所見を示していた<sup>10)</sup>。極めて稀であるが PAL を鑑別診断のひとつとして考慮すべきであった。また、本症例は外科的切除により悪性リンパ腫の確定診断に至ったが、悪性リンパ腫に対する治療としての外科切除の意義は乏しいと報告されており、過大侵襲であったことは否めない。最近では経皮的針生検の Fine needle aspiration biopsy (FNA) で確定診断が得られることも多い。ただしこの手技はガイドラインでは推奨されておらず、FNA によって得られる検体量が組織型診断に十

分かどうかは議論のあるところである。また、リンパ腫のマーカーである sIL-2R は病勢を反映し、リンパ腫の診断および治療効果の評価に用いることができることから<sup>6)</sup>、術前に測定しておく必要があったと思われる。

## 結 語

副腎偶発腫は増加傾向にある。鑑別すべき疾患の特徴を理解し、治療方針を決定することが肝要である。

## 謝 辞

終わりに、ご指導いただきました器官病理 石川典由先生、丸山理留敬先生に深謝いたします。

## 参 考 文 献

- 1) Young WF Jr et al, Clinical practice. The incidentally discovered adrenal mass: N Engl J Med, 356(6): 601,2007
- 2) Terzolo M et al, AME position statement on adrenal incidentaloma: Eur J Endocrinol, 164(6): 851, 2011
- 3) Alexandra Ozimek et al, Bilateral primary adrenal non-Hodgkin's lymphoma and primary adrenocortical carcinoma - review of the literature preoperative differentiation of adrenal tumors: Endocrine Journal, 55: 625-638, 2008
- 4) Grigg AP, Connors JM, Primary adrenal lymphoma: Clinical Lymphoma, 4: 154-160, 2003
- 5) Zargar A. et al, Adrenal insufficiency due to primary bilateral adrenal non-Hodgkin's lymphoma: Experimental and Clinical Endocrinology and Diabetes, 112: 462-464, 2004
- 6) Gideon Sroka et al, Laparoscopic adrenalectomy for malignant lesions: surgical principles to improve oncologic outcomes: Surg Endosc, 2013 (PUBLISHED ONLINE)
- 7) Martha A. Zeiger et al, AACE/AAES Adrenal incidentaloma guidelines: Endocr Pract, 15 Suppl 1: 1-20, 2009
- 8) T. Morris et al, Guidelines for the management of the incidentally discovered adrenal mass: Can Urol Assoc J, 5: 241-7, 2011
- 9) Lynnette K. Nieman et al, Approach to the patient with an adrenal incidentaloma: J Clin Endocrinol Metab, 95: 4106-4113, 2010
- 10) Wang Jun-ping et al, Imaging features of primary adrenal lymphoma: Chi Med J, 122: 2516-2520, 2009