

《ノート》

テス **T** ツ **S** テ **R** オン 分泌型副腎腺腫の一例

A Testosterone-producing Adrenal Cortical Adenoma

田中 正博* 田中 茂子* 澤 久* 小泉 義子*
越智 宏暢* 小野山靖人* 寺田 隆久** 船井 勝士**

Masahiro TANAKA*, Shigeko TANAKA*, Hisashi SAWA*, Yoshiko KOIZUMI*,
Hironobu OCHI*, Yasuto ONOYAMA*, Takahisa TERADA** and Katsuji FUNAI**

**Department of Radiology
**Department of Urology Osaka City University*

I. はじめに

正常の成人男女にみられる男性化はアンドロゲンの作用による。女性に男性化徵候が認められたときには Cushing 症候群・Stein Leventhal 症候群・卵巣男性化腫瘍・副腎腫瘍・突発性男性化などを考えなければならない。若い女性の男性化の大部分は卵巣の機能異常によることが多く、副腎腫瘍の報告例は少ない¹⁾。特にテス **T** ツ **S** テ **R** オン 分泌型副腎腫瘍の報告は調べ得た範囲内では、世界で 7 例の報告があるのみである^{2~8)}。今回、われわれはテス **T** ツ **S** テ **R** オン 分泌型副腎腺腫の一例を経験したので報告する。

II. 症 例

症例は30歳の女性で、続発性無月経と男性化を主訴として来院した。20歳前後より月経がだいに不規則となり、22歳ころより毛深く、声が低くなってきた。昭和56年1月に婦人科で右副腎囊胞

の疑いがあるといわれていたが放置していた。同年8月以降月経が認められず、精査のため泌尿器科を受診した。現症として右季肋下に表面平滑、弾性硬、圧痛のある腫瘍を 5 横指触れ、その下方に腎臓を触知した。体毛は全体に密で、陰核肥大を認めた。血圧は正常範囲内であった。検査所見として尿中 17-KS・血中 11-OHCS・ACTH・TSH 血清電解質は正常であった。尿中 17-OHCS は低値を示し、血中テス **T** ツ **S** テ **R** オン の上昇を認めた。デキサメサゾン抑制試験とメトビロン試験は陰性であった。主な検査結果を Table 1 に示す。X線 CT 像では正中線をこえる巨大な腫瘍が右上腹部を占め、正常肝は著しく左方に圧排されていた。腫瘍の辺縁は明瞭で、内部には不整形の低吸収域が認められた。造影後 CT 像では腫瘍辺縁部は正常肝と同程度に造影されるが、単純像で低吸収域

Table 1 Laboratory Data

Urine	17-KS	7.8 mg/day	(3.5 - 11.6)*
	17-OHCS	0.2 mg/day	(2.3 - 7.8)
Serum	11-OHCS	30.7 µg/dl	(7.0 - 23.0)
	ACTH	10.7 µg/dl	(10.0 - 100.0)
	TSH	2.1 µg/dl	(- - 10.0)
	Testosterone	7.8 ng/ml	(0.66 - 1.95)

*() normal limits

* 大阪市立大学医学部放射線科
** 同 泌尿器科

受付：58年7月8日

最終稿受付：58年9月12日

別刷請求先：大阪市阿倍野区旭町1-5-7 (545)

大阪市立大学医学部放射線科

田 中 正 博

Key words: Adrenal gland, Testosterone-producing adenoma, ⁶⁷Ga-citrate scintigraphy.

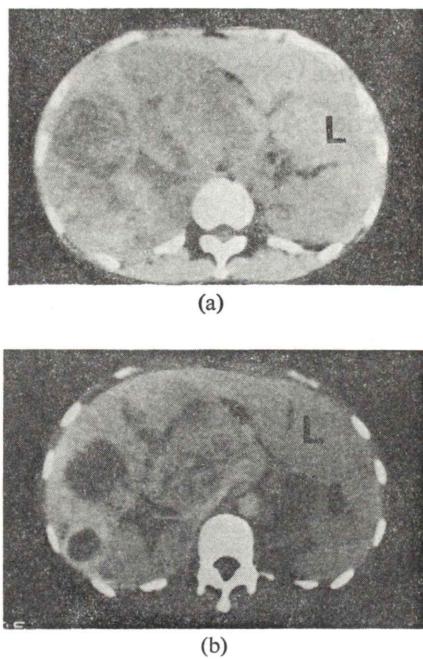


Fig. 1 Body CT.

(a) pre-contrast, (b) post-contrast liver (L) was compressed to left by mass.

を示した部分は造影されなかった(Fig. 1). ^{99m}Tc -phytate 3 mCi による肝コロイドシンチグラムでは右葉下部に欠損像を認め (Fig. 2 a, b), ^{67}Ga -citrate 2 mCi 静注72時間後のシンチグラム後面像では肝右葉下部に肝よりも強い不均一な集積を認めた (Fig. 2c). ^{131}I -adsterol 1 mCi 静注 8 日後の副腎シンチグラム後面像では左副腎はほぼ正常に描出されているが、右側は大きな腫瘍部に集積し、Ga シンチグラムとほぼ同じ分布を示した (Fig. 3). 血管造影上、腫瘍は上・中・下副腎動脈に栄養されていた。腫瘍の辺縁は明瞭で被膜を伴っており、外部への浸潤は認めなかった。微細な腫瘍血管の密な増生と実質相で不均一な腫瘍濃染を認めたが、明らかな悪性所見は認めなかった (Fig. 4). ^{67}Ga -citrate の集積があったことから右副腎の悪性腫瘍も否定できず、開腹手術が施行された。摘出された腫瘍は小児頭大で、肉眼的には表面平滑な被膜を伴っており、周囲組織との癒着はわずかであった。内部には壊死組織・凝血塊が混在していた。

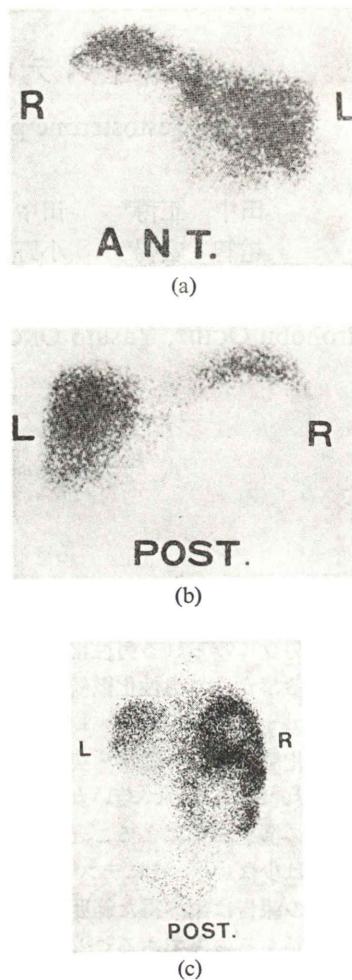


Fig. 2 (a) Liver scintigram by ^{99m}Tc -phytate anterior view
 (b) Liver scintigram by ^{99m}Tc -phytate posterior view
 (c) ^{67}Ga -citrate scintigram

病理組織学的には細胞核の大小不同と軽度の異型性を認め、旺盛な増殖像を呈する束状層由来の副腎皮質腺腫の診断が得られた。手術後内分泌機能の検査値は正常化しており、再発の徵候は認められていない。

III. 考 察

アンドロゲンを分泌する副腎腫瘍は10歳以下の小児と40歳以上の成人に多い^{8,9)}。またこのとき

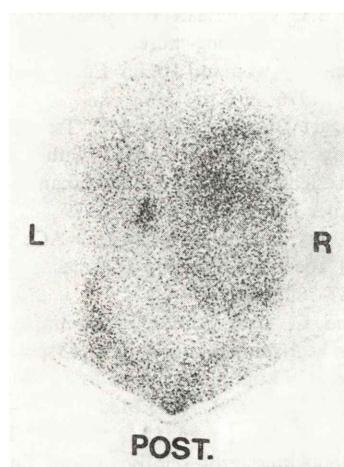
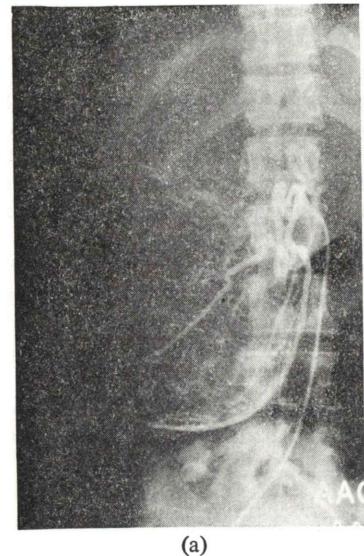


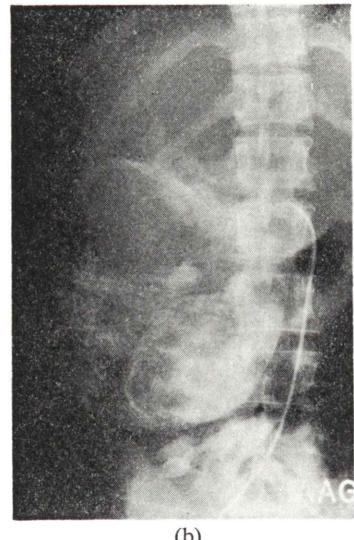
Fig. 3 Adrenal scintigram by ^{131}I -adsterol.

に分泌される男性ホルモンはデハイドロアンドロステロンとアンドロステジオンが主で、尿中 17-KS の増加として認めることができる。テストステロンの上昇を認める症例もあるが、これは末梢で代謝されるためと言われている。一方卵巣原発男性化腫瘍はテストステロンを分泌し、デハイドロアンドロステロンは低値のままのことが多い¹⁾。したがって尿中 17-KS 低値、テストステロン高値を示す男性化腫瘍は卵巣原発であることが多い。しかし、本症例は血管造影で副腎動脈からの血流を証明し、組織学的にも副腎原発を確認している。通常内分泌臓器に腺腫等によるホルモン産生過剰状態が発生すると、フィードバックがかかり廃用性萎縮のおこることが知られている¹⁰⁾。本症例では ^{131}I -adosterol による副腎シンチグラム上巨大な右副腎腫瘍と正常大の左副腎が描出されており、左副腎の機能は残存している。これは右の副腎腺腫がテストステロンのみを特異的に産生し、左副腎が抑制されなかつたためと考えられる。

Bertagna⁹⁾ らによると副腎皮質男性化腫瘍のうち 89% が癌腫であったという。副腎皮質腫瘍の良悪性の鑑別は病理組織学的検索でも困難とされ、真の鑑別には遠隔転移及び浸潤を認めないこと、と述べている^{8,9)}。この症例でも術前診断のうち血管造影では明らかな悪性所見を認めなかつたが、 ^{67}Ga -citrate が集積したことより悪性と考えた。



(a)



(b)

Fig. 4 Selective middle adrenal arteriogram.
(a) arterial phase, (b) capillary phase right kidney was compressed downward by mass.

良性の副腎皮質腺腫に ^{67}Ga -citrate が集積した報告はなく、病理組織学的検索でも炎症細胞の浸潤像は認められなかつた。本症例に ^{67}Ga -citrate が集積した機序は不明である。総合画像診断的にも、副腎皮質腫瘍の良悪性の鑑別は困難であると思わせた一症例であった。

文 献

- 1) Williams RH: Textbook of endocrinology, W.B. Saunders Company, Philadelphia, 1981, p. 279
- 2) Pittaway DE, Givens JR, Wiser WL, et al: In vivo and in vitro studies on an HCG responsive testosterone secreting adrenal adenoma. Presented at the fifty-fifth annual meeting of the Endocrine Society, Chicago, Illinois, Abstract No. 11, June 1973
- 3) Werk EE Jr., Sholiton LJ, Kalejs L: Testosterone-secreting adrenal adenoma under gonadotropin control. *New Engl J Med* **289**: 767-770, 1973
- 4) Burr IM, Graham T, Sullivan J, et al: A testosterone-secreting tumor of the adrenal producing virilisation in a female infant. *Lancet* **2**: 643-644, 1973
- 5) Givens JR, Andersen RN, Wiser WL, et al: A gonadotropin-responsive adrenocortical adenoma. *J Clin Endocr Metab* **38**: 126-133, 1974

- 6) Larson BA, Vanderlaan WP, Judd HL, et al: A testosterone-producing adrenal cortical adenoma in an elderly woman. *J Clin Endocr Metab* **42**: 882-887, 1976
- 7) Schteingart DE, Woodbury MC, Tsao HS, et al: Virilizing syndrome associated with an adrenal cortical adenoma secreting predominantly testosterone. *Amer J Med* **67**: 140-146, 1979
- 8) Kogon BA, Sonda LP, Diokno AC: Virilizing adrenal adenoma secreting testosterone. *J Urolo* **126**: 787-788, 1981
- 9) Bertagna C, Orth DN: Clinical and laboratory findings and result of therapy in 58 patients with adrenocortical tumors admitted to a single medical center (1951 to 1978). *Am J Med* **71**: 855-875, 1981
- 10) Dixon RM, Lieberman LM, Gould HR, et al: [^{131}I] iodocholesterol scintiscan and rare "functional" black adenoma of the adrenal cortex. *J Nucl Med* **24**: 505-507, 1983