

術中所見より Adrenohepatic fusion が疑われた

原発性アルドステロン症の1例

島根県立中央病院泌尿器科

吉野 干城*・毛利 直人・大島 勝太
瀬 島 千 晴・岡 優 里・小林 祐 介
山 崎 拓

島根県立中央病院内分泌代謝科

並 河 哲 志・伊 東 康 男

島根県立中央病院病理診断科

大 沼 秀 行

島根県立中央病院放射線科

湯 浅 貢 司

島根大学医学部附属病院泌尿器科

安 本 博 晃・椎 名 浩 昭

抄録:

症例は45歳, 男性。検診で高血圧を指摘され, 当院内科を受診し, 降圧剤投与開始となった。画像検査上, 両側副腎に腫瘍などは指摘できなかったが, 内分泌学的検査にて血中アルドステロン高値, アルドステロン/レニン活性比高値, フロセミド立位試験で陽性を観察した。さらに, 副腎静脈サンプリングを実施し, 右が患側の原発性アルドステロン症の診断に至った。手術希望もあり, 2018年5月当科へ紹介となった。2018年6月に腹腔鏡下右副腎摘除術経腹膜到達法を実施した。腹腔内癒着は目立たず, 順調に手術を進めることができたが, 頭側の副腎と肝下面間に強固な癒着を観察した。鈍的に剥離することが不可能であったため, 可及的に癒着部を全周性に剥離したのちに副腎側に一部切り込むかたちを選択した。気腹時間80分, 出血量少量であった。病理組織学的検査により多発性の副腎皮質腺腫を認めた。術後, 降圧剤は中止することができた。今回, 術中所見より Adrenohepatic fusion (AHF) が疑われた症例を経験した。術前に AHF を正確に予測することは不可能であるため, 右副腎摘除術を実施する際には AHF に備えた切離ラインを検討しておく必要があるのではないかと考える。

(西日泌尿, 82:142-146, 2020)

キーワード: adrenohepatic fusion, 副腎腫瘍, 原発性アルドステロン症, 右副腎摘除術, 腹腔鏡下副腎摘除術

結 言

右副腎摘除術において, 時に副腎と肝下面間の強固な癒着を経験することがある。Adrenohepatic fusion

(AHF) は, 副腎および肝の被膜の一部が癒合あるいは欠損し, 各々の臓器の実質細胞が混在する状態であり, 前述の癒着の原因として指摘されている^{1)~4)}。今回われわれは, 術中所見より AHF が疑われた原発性アルドステロン症の1例を経験したので, 若干の文献的考察を加えて報告する。

* 〒693-8555 出雲市姫原4-1-1
TEL 0853-22-5111, FAX 0853-21-2975
E-mail: uroltateki@yahoo.co.jp

症 例

患者 45 歳, 男性

主訴 検診で指摘された高血圧

家族歴 特記事項なし

既往歴 特記事項なし

現病歴 2018 年 2 月, 検診で指摘された高血圧を主訴に当院内科を受診し, 降圧剤投与開始となった。その後, 内分泌代謝科での精査の結果, 原発性アルドステロン症の診断に至った。同年 5 月, 手術加療目的に当科へ紹介となった。

現症 身長 166 cm, 体重 53 kg, 血圧 138/85 mmHg, 脈拍 80/分・整, 体温 36.2℃。胸腹部には特記すべき異常所見なし

検査所見 (内分泌代謝科) 末梢血液検査および電解質を含む血液生化学検査では異常値を認めなかった。尿検査も同様に正常であった。内分泌学的検査において, 血中レニン活性は 0.3 ng/ml/hr と基準値範囲内だったが, 血中アルドステロン: 150 pg/ml, アルドステロン/レニン活性比: 500 といずれも高値を認めた。また, フロセミド立位試験でのレニン 2 時間値は 0.9 と陽性であった。その後に実施した副腎静脈サンプリングの結果も踏まえ, 右が患側の原発性アルドステロン症の診断に至った。

造影 CT 検査所見 (Fig. 1) 右副腎は腫瘍形成を認めず, ほぼ正常な副腎所見であった。

治療経過 上記より右が患側の原発性アルドステロン症の診断のもと, 経腹膜到達法による腹腔鏡下右副腎摘除術を実施した。

体位は左下の正側臥位とした。右腹直筋外縁の 2 横指外側で肋骨弓下の 3 横指尾側にカメラ用ポート, 肋骨弓下の右腹直筋外縁に術者右手用ポート (12 mm), カメラ用ポートの 3 横指外側の肋骨弓下に術者左手用ポート (12 mm), 剣状突起下に肝挙上用ポート (5 mm) とし

た。肝下縁に沿って腹膜を横切開し, 副腎周囲を剥離した。IVC に沿って副腎の内側を剥離していき, 中心静脈を同定後, 結紮切離した。その後, 副腎の頭側部分と肝下面間に強固な癒着を観察した (Fig. 2a, b)。同癒着部には明らかな腫瘍形成はみられなかったが, 鈍的に剥離することは困難で, 可及的に全周を剥離したのちに LigaSure™ で切離した。完全に切り離す前に肝下面に残存した副腎組織を剥離し, 摘出検体側に付けるようにした (Fig. 2c)。肝下面にわずかに残存した副腎組織は微小腺腫の可能性も考慮して, バイポーラで十分に凝固した (Fig. 2d)。右副腎組織を回収袋に収納し, 体外へ摘出後, 手術を終了した。気腹時間は 80 分, 出血量は少量であった。

病理組織学的検査所見 右副腎の断面 (Fig. 3a) では明らかな腫瘍形成はみられず, 褐色に変化した 2 カ所に腺腫 (Fig. 3b) の存在を確認した。肝に癒着していた部分も含めて, 十分に検索したが, 副腎内に明らかな肝や胆管組織はみられなかった。

術後経過 合併症はみられず, 術後 8 日目に退院された。その後, 血中アルドステロン値は正常化し, 降圧剤から離脱できた。

考 察

右副腎摘除術において, 副腎の最頭側部と肝下面間に癒着を認め, 剥離が困難な状況に遭遇することが以前から指摘されている³⁾。Adrenohepatic fusion (AHF) は, この生理的癒着の原因として指摘されており, 副腎および肝の被膜の一部が癒合あるいは欠損し, 各々の臓器の実質細胞が混在する状態である^{1)~4)}。AHF の頻度に関しては, 以前の報告では 10% 以下であったが^{1) 2)}, 最近では 20.9%⁴⁾, 28.1%³⁾ の報告がみられ, その頻度は決して稀ではない。年齢別では, 若年者で極めて低頻度で 50 歳台以降での増加がみられることより, AHF は後天的な発生が主体ではないかと考えられている^{2) 3)}。AHF は,

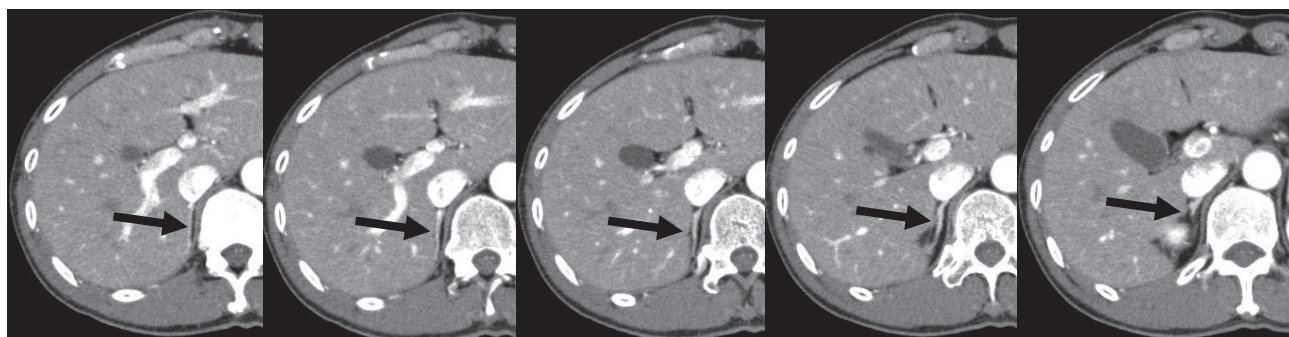


Fig. 1 Axial image of enhanced computed tomography shows right adrenal gland (arrow), which has no mass lesions.

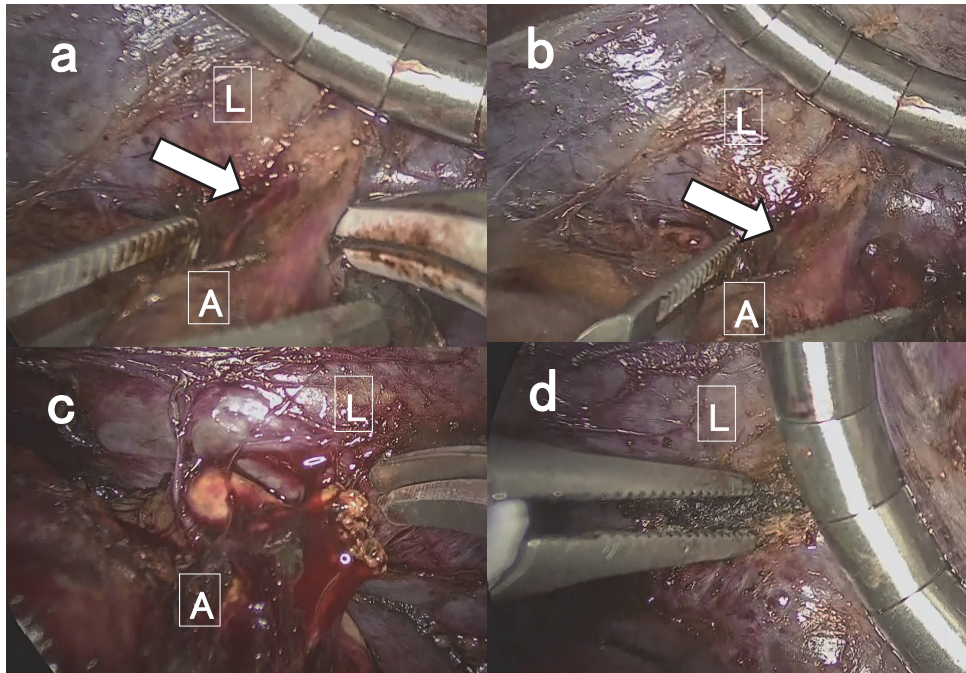


Fig. 2 Intraoperative findings (A: right adrenal gland, L: liver). Tight adhesion (white arrow) between the lower surface of the liver and the right adrenal gland was identified (a and b). The right adrenal gland was dissected from the lower surface of the liver using scissors (c). The residual tissue of the right adrenal gland on the lower surface of the liver was coagulated by bipolar forceps (d).

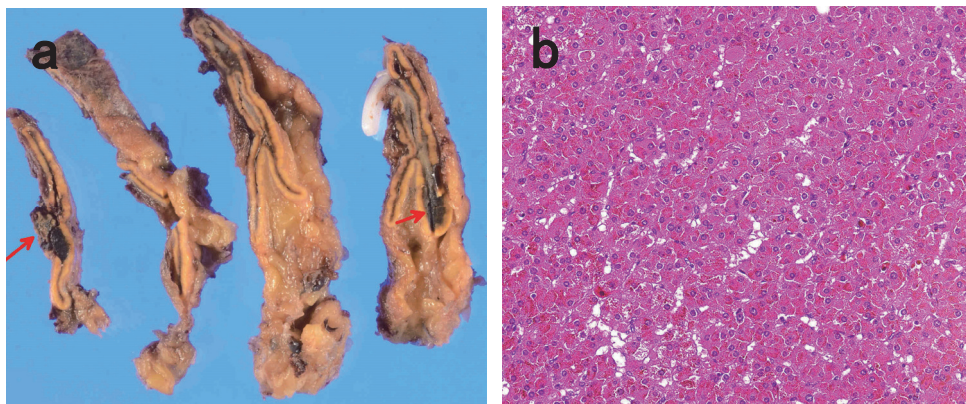


Fig. 3 Cut surface of the specimen (a) shows no mass lesions, but two brownish lesions (red arrows) are evident in the right adrenal gland. Microscopic findings (b) of the brownish lesions reveal adrenal adenoma.

a) 肝組織内に副腎皮質細胞を認めるもの、b) 副腎皮質内に肝細胞や胆管上皮細胞を認めるもの、c) a) および b) の両者を認めるもの、の3つのタイプに分類されることが多く、タイプ a) が最多であることが報告されている^{2) 3)}。自験例に関しては、手術操作で副腎側に切り込んだこともあり、検索はしたが組織学的な AHF の診断には至っていない。しかし、術中所見より臨床的には限りなく AHF が疑われた症例と考えるが、タイプ a) が最多である事実を考慮すると、肝臓側に切り込んで一

部の肝組織ごと摘出した検体でなければ組織学的 AHF の診断に至るのは難しいのかもしれない。

肝および副腎疾患と AHF の頻度との関連について、肝炎や肝硬変などの肝疾患症例において AHF が有意に増加する報告はない^{2) 3)}。また、副腎に関しても同様に、AHF を認めた症例の大多数が非機能性副腎腺腫であったとの報告もある²⁾。よって、現時点では肝と副腎における特定の疾患で AHF の頻度が増えるということはないようである。

副腎腫瘍に対する体腔鏡下手術は、1992年にGagnerら⁵⁾によって経腹膜的な腹腔鏡下副腎摘除術として初めて報告され、現在ではその低侵襲性、安全性は確立され、良性副腎腫瘍に対する標準術式として定着している。腹腔鏡下右副腎摘除術の手術難度へのAHFの影響に関しては、いずれの報告もみられる。Sugimotoら³⁾は、AHFの有無で手術時間や出血量に差はなかったと報告している。一方、井上ら⁴⁾の報告では、多変量解析においてAHFが長時間手術、出血多量を予測する最も独立した因子であることを指摘している。ただし、前者の報告の術式では、基本的に肝臓側への切り込みは行っておらず、このことが、有意差が出なかった理由の1つではないかと考察されている。

また、AHFが癌進展のルートになっている可能性が指摘されている。その根拠として、肝細胞癌の副腎転移は左側より右側で2倍多く^{6) 7)}、副腎転移のみを有する肝細胞癌では左側よりも右側で予後良好であることが報告されている⁸⁾。血行性転移が主体である左副腎転移に比べ、右副腎転移はAHFを介した直接浸潤の転移形式が存在するのではないかと推測されている³⁾。

AHFの術前予測因子に確立されたものはないが、術前画像所見としていくつかの報告がある。術前のCT所見で副腎腺腫が肝に一部埋没するような所見はAHFを予測する因子となるのではないかと意見がある^{9) 10)}。また、腫瘍形成のない副腎では、肝との境界が不明瞭で間に脂肪が介在しない所見も予測因子となるのではないかと指摘がある¹⁰⁾。自験例のCT所見を見直してみると、後者の所見に一部合致していたのではないかと考えられ、今後の右副腎摘除術の術前検討の際には注意深く評価したいと思う。そのほか、術前の血中CRP値および好中球リンパ球比の高値が有意にAHFと関連したとする報告もみられる⁴⁾。

AHFの対応に関して、Sugimotoら³⁾は、副腎腫瘍は良性が多く、術前診断で良性と判断しているのならば、肝損傷やそれに伴う強出血を予防する意味でも、敢えて肝に切り込むことは回避してもいいのではないかと述べている。伊藤ら¹¹⁾も、癒着部に腫瘍の存在が疑われない場合は、副腎側に切り込むことを提案している。しかし、肝下面に残存した副腎組織は微小腺腫が存在している可能性を考慮して、十分な凝固の追加を推奨している。自験例でも、副腎側に切り込んだ後、肝下面に残存する副腎組織を可及的に摘出検体側に付けるように剥離し、わずかに残存した組織に対してはバイポーラでの凝固を追加した。病理学的に悪性所見はみられず、内分泌学的にも改善を確認することができた。

過去の報告も踏まえ、右副腎摘除術を実施する際にはAHFの存在の可能性を考慮し、その対応を検討しておく必要があると考える。

結 語

Adrenohepatic fusion (AHF) が疑われた原発性アルドステロン症の1例を経験し、その治療結果を報告した。AHFの頻度は稀ではなく、また、術前にAHFを正確に予測することは不可能である。右副腎摘除術を実施する際には、これらの事実を念頭に置いて切離ラインを検討しておく必要があると考える。

(本論文の要旨は第7回山陰泌尿器内視鏡研究会において発表した。)

文 献

- 1) Dolan, M. F. and Janovski, N.A.: Adreno-hepatic union. (Adrenal dystopia). Arch. Pathol. **86**: 22-24, 1968.
- 2) Honma, K.: Adreno-hepatic fusion. An autopsy study. Zentralbl. Pathol. **137**: 117-122, 1991.
- 3) Sugimoto, M. et al.: Cellular intermingling between adrenal gland and liver: an infrequent cause of incomplete resection at right adrenalectomy. J. Endourol. **27**: 804-808, 2013.
- 4) 井上省吾・他: 腹腔鏡下右副腎摘除術におけるAdrenohepatic fusion. 副腎と肝臓の癒着が手術成績におよぼす影響について. 107回日本泌尿器科学会総会, 2019.
- 5) Gagner, M. et al.: Laparoscopic adrenalectomy in Cushing's syndrome and pheochromocytoma. N Engl J Med. **327**: 1033, 1992.
- 6) Taniai, N. et al.: Adrenal metastasis from hepatocellular carcinoma (HCC): report of 3 cases. Hepatogastroenterology. **46**: 2523-2528, 1999.
- 7) Momoi, H. et al.: Management of adrenal metastasis from hepatocellular carcinoma. Surg Today. **32**: 1035-1041, 2002.
- 8) Okano, K. et al.: Adrenal metastasis from hepatocellular carcinoma through an adrenohepatic fusion. J. Clin. Gastroenterol. **38**: 912, 2004.
- 9) Park, B. K. et al.: Cortical adenoma in adrenohepatic fusion tissue: clue to making a correct diagnosis at preoperative computed tomography examination. Eur. Urol. **56**: 1082-1085, 2009.

- 10) Park, J. J. et al.: Direct and indirect imaging features of adrenohepatic fusion. *Abdom. Radiol.* **41**: 377-383, 2016.
- 11) 伊藤明宏：【泌尿器科手術のトラブル対処法】

体腔鏡下手術 腹腔鏡下副腎手術 肝臓と副腎の癒着が剥離できない. *臨泌.* **65**: 78-79, 2011.
(2019 年 12 月 3 日受理)

SUSPECTED ADRENOHEPATIC FUSION BASED ON INTRAOPERATIVE FINDINGS : A CASE REPORT OF PRIMARY ALDOSTERONISM

TATEKI YOSHINO, NAOTO MOURI, SHOTA OSHIMA,
CHIHARU SEJIMA, YURI OKA, YUSUKE KOBAYASHI
AND TAKU YAMASAKI

Department of Urology, Shimane Prefectural Central Hospital, Izumo, Japan

SATOSHI NABIKA AND YASUO ITO

Department of Endocrine and Metabolic diseases, Shimane Prefectural Central Hospital,
Izumo, Japan

HIDEYUKI ONUMA

Department of Pathology, Shimane Prefectural Central Hospital, Izumo, Japan

KOJI YUASA

Department of Radiology, Shimane Prefectural Central Hospital, Izumo, Japan

HIROAKI YASUMOTO AND HIROAKI SHIINA

Department of Urology, Shimane University Faculty of Medicine, Izumo, Japan

Abstract:

A 45-year-old man who had undergone a medical examination which had detected hypertension, was introduced to the Department of Internal Medicine in our hospital and an antihypertensive agent was initiated. Subsequent imaging studies showed no mass lesions of the bilateral adrenal glands. However, a high value of plasma aldosterone concentration and aldosterone-to-renin ratio, and positive results of furosemide upright test were recognized on endocrinological examination. Moreover, on the basis of adrenal venous sampling, the patient was diagnosed with primary aldosteronism of the right adrenal gland. He was subsequently introduced to our department and underwent laparoscopic adrenalectomy via the transperitoneal approach. Hemodynamic fluctuation was not observed during the operation. Tight adhesion between the lower surface of the liver and the right adrenal gland was identified. Due to difficulty in carrying out blunt dissection between two organs, we made a division at the adrenal side and coagulated the residual adrenal tissue on the liver. Histopathological examination revealed multiple adrenal adenomas. Postoperatively, antihypertensive agent was withdrawn. Because adrenohepatic fusion could not be predicted with great accuracy preoperatively, it was necessary to prepare a dissection line appropriate for a case of adrenohepatic fusion when carrying out the right adrenalectomy.

(Nishinohon J. Urol. **82** : 142-146, 2020)

key words : adrenohepatic fusion, adrenal tumor, primary aldosteronism, right adrenalectomy, laparoscopic adrenalectomy