症例

大網腫瘍を疑い手術した Normal Sized Ovary Carcinoma Syndromeの1例

国立横浜病院外科，同病理*，同産婦人科**

土井卓子 西山 潔 大滝 修司
山岸 茂 若杉 純一 吉田 謙一
田口 智也* 富久尾 信** 中村 秋彦**

A Case Report of Normal Sized Ovary Carcinoma Syndrome (resembling to a tumor of great omentum)

Takako DOI, Kiyosi NISHIYAMA, Syuuji OOTAKI,
Shigeru YAMAGISHI, Juniti WAKASUGI, Keniti YOSHIDA,
Tomoya TAGUTI*, Shin FUKUO** and Akihiko NAKAMURA**

*National Yokohama Hospital, Department of Surgery, *Pathology and **Gynecology*

症例は58歳，女性。左下腹部腫瘍を主訴に受診した。血液検査所見ではCA-125かやや高値である以外異常はなかった。CTスキャン，MRI，超音波検査など画像所見より大網腫瘍の疑いとなり，手術を施行した。大網には多数の腫瘍があり，タクラス窩にも播種性と思われる腫瘍が数個みられた。右卵巣に嚢腫があり大網と右卵巣を摘出した。病理結果は腹膜原発のSerous Papillary Carcinomaの診断となり，予後改善のため播種性腫瘍の切除を施行した。播種性腫瘍とともに合併切除した左卵巣は肉眼的には異常無かったが，病理組織像では内部に多数の癌細胞があり，この症例は卵巣癌であり，Normal Sized Ovary Carcinoma Syndromeであったことが分かった。稀な症例を経験したので報告する。

索引用語 Normal Sized Ovary Carcinoma Syndrome，大網腫瘍 (Tumor of Great Omentum)，卵巣癌 (Ovarian Carcinoma)

はじめに

Normal Sized Ovary Carcinoma Syndrome (以下NSOCS)¹⁾は提唱されてまた新しい概念の症候群であり，婦人科領域では症例報告も散見されるようになってきたか外科医にとってはあまり馴染みかない。しかし臨床現場では手術施行時，開腹するとびまん性の播種性転移巣が腹腔内に散在するか卵巣は正常大であるというこの症候群に遭遇することもある。手術時どこまで切除するか

を判断するうえでも，また術後の化学療法を選択するうえでも正しい病理診断をつけることが重要だか原発巣の診断確定は容易ではない。

今回，大網腫瘍の診断で開腹し，一度は腹膜原発のSerous Surface Papillary Carcinoma (以後PPSC)と診断したか，追加切除を行い卵巣原発のSerous Papillary CarcinomaであったNSOCSの1例を経験したので，報告する。

症 例

症例：58歳，女性。

主訴：左下腹部腫瘍。

既往歴：昭和55年，S状結腸癌でS状結腸切除術を受けている。中分化型腺癌，2型，H0，P0，n1，stage IIIa，根治度Aであった。術後経過は良好で，現在まで転移，再発なく順調である。

家族歴：特記すべきことはない。

月経・妊娠歴：初経13歳，妊娠2回，出産2回，閉経52歳，閉経後不正出血などの異常はなかった。

現病歴：平成9年7月14日，偶然左下腹部腫瘍に気付き来院した。疼痛および消化器症状はなかった。7月30日精査治療目的で入院となった。

〈入院時現症〉

入院時現症：身長150cm，体重55kg，全身所見に特に異常はなかった。腹部所見では臍の2cm左側に径6cm，楕円形，表面粗大結節状，弾性硬，可動性のある腫瘍を触知した。圧痛はなかった。

婦人科診察所見：右卵巣に径1cmの嚢胞があった。これ以外は異常は認められなかった。

〈入院時検査所見〉

末梢血液，生化学検査：異常値はなかった。

腫瘍マーカー：CEAは1.8ng/dlと正常値であったが，CA-125は58U/mlとわずかに高値であった。

上部消化管造影および注腸造影：消化管には異常がなかったが，腫瘍は胃体部および横行結腸に接しており，胃の動きにつれて上下に移動した。

上部消化管および大腸内視鏡検査：食道，胃十二指腸，大腸に異常はなかった。

CTscan：左側腹部に形状不正，内部構造不均一な約5cmの腫瘍が認められた（Fig. 1）。

MRI：横行結腸に接してT1強調像で低信号，T2強調像で一部嚢胞状と思われる高信号部分を有したやや高信号の約5cmの腫瘍が認められ，淡く造影された（Fig. 2）。

腹部超音波検査：腹壁直下に境界明瞭，不正形で内部エコー不均一な約5cmの腫瘍が認められた（Fig. 3）。

〈入院後の経過〉

症状，画像所見より大網腫瘍の診断となり平成

Fig. 1 CTscan

CTscan shows a irregular shaped heterogeneous tumor in left lower abdomen.

9年8月20日手術を施行した。

手術所見：開腹すると大網には最大径5cmの腫瘍を初めとして多数の小腫瘍があり，術前に触知していたのはこの最大の腫瘍であると思われ，これは横行結腸に直接浸潤していた。ダグラス窩にも1～2cmの腫瘍が数個認められた。腹水はなく，肝臓も異常はなかった。左卵巣は異常なく，右卵巣は1cmの嚢胞がみられた。腫瘍の浸潤した横行結腸を合併切除して，大網を摘出した。嚢胞があるため右卵巣も摘出した。ダグラス窩の腫瘍は播種性の転移と考え，腹腔内にリザーバーを留置して手術を終了した。

病理組織所見：大網の腫瘍の断面はいずれも白色充実性で，一部に嚢胞状の部分を持っていた。合併切除した横行結腸は粘膜面には異常はなく，外からの浸潤であることが確認できた（Fig. 4）。弱拡大では周辺にcribriform patternをとる腫瘍細胞のnestがあり，中心部はびまん性に拡がった乳頭状の腫瘍細胞があり，強拡大にするとpsammoma bodyがみられた。嚢胞状の部分も同様の腫瘍細胞で占められていた（Fig. 5）。右卵巣には嚢胞があったがここには腫瘍細胞はなく，卵巣の表面にごくわずかに腫瘍細胞が認められただけで，卵巣内部には異常はなかった。腹膜中皮腫または腹膜原発のPPSCの疑いとなった。鑑別のため免疫組織染色を施行した。結果はTable. 1に示す通りで，CA-125，CEA，S-100蛋白が陽性であることから，腹膜原発のPPSCの診断となった。

Fig. 2 MRI

T1-weighted image shows a low intensity tumor in left lower abdomen. T2-weighted image shows a moderately high intensity tumor, cystic lesion exists in tumor. Tumor is slightly enhanced by Gd-DTPA.

術後経過: ダグラス窩の腫瘍は播種性の転移巣であり、子宮と直腸の合併切除をしなければ切除ができない状態であったため、病理診断の確定していない初回手術時には摘出しなかった。しかしPPSCは腹腔内の遺残腫瘍が少ないほど予後が良いとの報告が多く²³⁾、ダグラス窩の腫瘍の再切除も考慮して下腹部のMRIを施行した。直腸と子宮のあいだに嚢胞性の病変があるのをはじめとし

Fig. 3 Ultrasonography (US)

US shows a irregular shaped, partially cystic tumor. Size of tumor is 5cm in diameter and internal echo of tumor is heterogeneous.

Fig. 4 Macroscopic findings of the resected specimen. Some tumors exist in resected great omentum. A largest tumor is 5cm in diameter and cystic lesion exists in tumor. The largest tumor invaded into transverse colon.

て、子宮の表面などに腫瘍がみられた (Fig. 6)。腹腔内の遺残病変を可能な限り切除することを目的として平成9年10月1日、再手術を行った。子宮、浸潤直腸、左卵巣、腫瘍の直接浸潤した虫垂、および腫瘍の認められるダグラス窩の腹膜を一塊として摘出した。肉眼的には腫瘍の遺残は無かった。

病組織所見: 腹膜、子宮、直腸、虫垂などの病変部はいずれも1回目の病変と同様の腫瘍像であった。左卵巣は、卵巣実質内部にcribriform patternをとる腫瘍細胞のnestが充満し、多数のpsammoma bodyがみられた。腹膜ではなくこれが播種

Fig. 5 Histioathological findings of the resected specimen (HE) Tumor cells make cribriform pattern nests. There exists psammoma bodies. We diagnosed it serous surface papillary carcinoma of peritoneum.

性病変の原発であったと考えられた (Fig. 7)。PPSCではなく 卵巣原発のSerous Papillary Car-

Table. 1 IMMUNOHISTOCHEMISTRY OF PERITONEAL MESOTHERIOMA AND SEROUS CARCINOMAS

Antigen	Mesothelioma (percent)	Serous Carcinoma (percent)
Cytokeratin	100	100
Epithelial membrane antigen	80	100
CA-125	15	90
Amylase	20	35
Leu-M1**	10	75
S-100 protein	10	85
Carcinoembryonic antigen	0	15
Placental alkaline phosphatase	0	65
B72.3	0	70
Vimentin	40	30
Human milk fat globule-2 (HMFG-2)	60	90

cinomaの診断となった。

その後の経過：現在リザーバーからの腹腔内投与併用の化学療法CAPを施行中である。現在追加切除術後3カ月が経過したが再発および腹水貯留なく経過良好である。

考 察

この症例は大網腫瘍と診断し、開腹したところ広範な腹腔内播種性病変を認め、肉眼的には卵巣には異常無く、1989年Feueruらの提唱したNSOCS¹⁾を呈していた。NSOCSには中皮腫、性腺外ミューラー管腫瘍、転移性腫瘍、卵巣癌などが

Fig. 6 MRI

T1-weighted image shows a low intensity tumor, T2-weighted image shows a high intensity tumor in Douglas pouch.

含まれるが、なかなか診断の確定は難しい。本例も術前にはS状結腸癌の転移・再発および悪性繊維性組織球腫、平滑筋肉腫などの大網腫瘍を疑っていた。初回手術後も摘出標本のHE染色からは腹膜中皮腫、PPSCを疑い、免疫組織染色の結果から一旦はPPSCの診断となった。PPSCと卵巣原発のSerous Papillary Carcinomaは腫瘍の卵巣における存在状態の違いにより鑑別される。⁴⁾ 卵巣にはまったく腫瘍細胞が存在しないかあるいはあっても表面にわずかにのみ存在するものがPPSCで、卵巣内部のほとんどが腫瘍細胞に置き換わっているものが卵巣原発のSerous Papillary Carcinomaである。今回初回手術時に摘出した右卵巣には内部には腫瘍はまったくみられず、表面にわずかに認められただけでまさに典型的なPPSCの像であったため、PPSCと診断した。しかし予後を考えてたまたま左卵巣も追加切除したところ、肉眼的には全く異常を認めないが内部は典型的な卵巣原発のSerous Papillary Carcinomaの像であり

Fig. 7 Histoathological findings of the resected left ovary (HE)×100 Left ovary is filled with tumor cells

ここが本当の原発巣であったことが判明した。追加切除を行わなければ、正しい診断がつかず、適切な化学療法などの治療ができなかった可能性もある。初回手術時に両側の卵巣摘出を行っておくべきであったと考えている。外科では正常にみえる卵巣を摘出することにはためらいがちな面もあるが、腹部腫瘍などの症例で開腹してNSOCSと診断した際には、原発巣の確定ができない限りは、肉眼的に卵巣に異常を認めない場合でも両側の卵巣を摘出して確認することも重要と考えられた。NSOCSは腹部膨満感と腹水貯留⁵⁾⁶⁾⁷⁾⁸⁾⁹⁾、不正性器出血等が主訴となって来院する¹⁰⁾ものや子宮筋腫と合併していたもの¹¹⁾¹²⁾、がほとんどで、婦人科で治療されることが多いが、今回のように大網腫瘍として外科で手術することもあり、外科と婦人科が協力していくことがNSOCSの診断、治療成績の向上に大いに役立つと思われる。また本例はCA-125が58U/mlとわずかに高値であったが今回集めることができた24例のNSOCSの報告のうち16例にCA-125の記載があり、6例が本例のようにわずかに高値であり⁷⁾¹⁰⁾¹¹⁾¹²⁾、11例が500U/mlを超える異常高値であった⁵⁾⁶⁾⁷⁾⁸⁾。飯原らも指摘するように⁹⁾CA-125の上昇は本症候群を診断するうえで有用であり、外科でもこのような症例を診察した場合NSOCSも念頭において腫瘍マーカーの1つとしてCA-125も測定するべきだと考えている。

診断が困難であったまれなNSOCSの1例を経験したので報告した。

参考文献

- 1) Feuer GA, Shevchuk M, Calanog A: Normal-Sized Ovary Carcinoma Syndrome. *Obstet. Gynecol* 73: 786-792, 1989
- 2) Taus P, Petrus E, Pickel H, et al: Primary serous papillary carcinoma of the peritoneum: a report of 18 patients. *Eur J Gynaec Oncol* 3: 171-172, 1997
- 3) Ben-Baruch G, Sivan E, Moran O, et al: Primary Peritoneal Serous Papillary Carcinoma: A Study of 25 Cases and Comparison with Stage III-IV Ovarian Papillary Serous Carcinoma. *Gynecol Oncol* 60: 393-396, 1996

- 4) 山崎輝行, 波多野久昭, 藤井信吾・Normal-Sized Ovary carcinoma syndrome, 14例の病理組織学的解析. 日産婦会誌47 27-34, 1995
- 5) 中野孝之, 矢野方夫, 竹内 廣 正常大の卵巣に発生したSerous Surface Papillary Carcinoma (SSPC) の1例. 日産婦東京会誌43・472-476, 1994
- 6) 市塚清健, 星 真一, 野獄幸正 Normal-Sized Ovary carcinoma syndromeの1例, 日産婦神奈川会誌33 85-88, 1997
- 7) 紙谷節男, 大山俊樹, 木村 進他 Normal-Sized Ovary Carcinoma Syndromeを呈した3症例. 日産婦神奈川会誌31 70-74, 1995
- 8) 竹内久清, 飯田智博, 五十嵐雄一・右鼠径ヘルニア嚢に腺癌か発見されNormal-Sized Ovary Carcinoma Syndromeと考えた症例. 産婦の実際 45 605-608, 1996
- 9) 飯原久仁子, 山内直子, 坂本穂彦・Normal-Sized Ovary Carcinoma Syndrome. 臨検38:1441-1442, 1994
- 10) 桑野 譲, 神保正利, 九島己樹・不正性器出血を主訴としたNormal-Sized Ovary Carcinoma Syndromeの1例. 日産婦東京会誌45・273-276, 1996
- 11) 三宅秀彦, 加藤久盛, 竹内久美他: Normal-Sized Ovary Carcinoma Syndromeの3例. 日産婦東京会誌43 51-55, 1994
- 12) 井村有希, 山藤泰功, 横山哲也・子宮筋腫手術時に偶然発見されたnormal sized ovarian carcinomaの1例. 日産婦東京会誌43 145-148, 1994
- 13) 舟本 寛, 館野政也, 三輪淳夫 いわゆる“normal sized ovarian carcinoma”5症例の検討. 産と婦 58・1370-1375, 1991