症例

盲腸に穿通した卵巢奇形腫より生じた腺癌の1例

養老中央病院外科, 岐阜大学第1外科*

安村 幹央 飯田 辰美 後藤 全宏
二村 直樹 阪本 研一*

A Case of Adenocarcinoma Arising from the Ovarian Teratoma Penetrating into the Cecum

Mikio YASUMURA, Tatsumi IIDA, Masahiro GOTO,
Naoki FUTAMURA and Kenichi SAKAMOTO*

Department of Surgery, Yoro Central Hospital

**First Department of Surgery, Gifu University School of Medicine*

症例は75歳, 女性。検診で便潜血陽性を指摘され当院内科を受診した。右下腹部に弾性硬, 辺縁整な結節状の腫瘤を触知した。腹部CT上, 盲腸部に連続する石灰化を伴う球形腫瘤を認め, 大腸内視鏡検査で盲腸に辺縁不整な潰瘍と乳頭状腫瘤を認めた。生検で高分化型腺癌, 管状腺腫および扁平上皮と診断された。盲腸癌と診断し, 回盲部切除および右卵巢切除, 2群リンパ節郭清を施行した。5×5cm大の卵巢腫瘍が盲腸の漿膜面に癒着し, 粘膜面には潰瘍が形成され, 潰瘍底に毛髪が認められた。断面では毛髪, 黄色充実性部分, 石灰化部分が混在した。病理組織学的に卵巢腫瘍は盲腸の筋層を分断し粘膜に達しており, 骨, 軟骨, 気管粘膜, 皮膚組織に分化した成熟奇形腫と診断された。奇形腫由来の表皮および気管支粘膜で覆われた腺組織に高分化型腺癌が認められた。術後5年を経過した現在まで再発の徴候を認めていない。

索引用語: 卵巢奇形腫 (ovarian teratoma), 腺癌 (adenocarcinoma), 腸管穿通 (penetrate into the intestine)

はじめに

卵巢奇形腫の合併症として茎の軸捻転が最も多く, 腹腔内破裂あるいは隣接管腔臓器への穿通は極めて稀である。また, 卵巢奇形腫の悪性転化は0.8~5.0%と報告され¹⁾, 中でも腺癌はその4.7~13.7%を占めるに過ぎない^{2)~5)}。今回われわれは, 右卵巢奇形腫が盲腸に穿通した部分に腺癌が発生した極めて稀な1例を経験したので報告する。

症 例

患 者: 75歳, 女性。
主 訴: 便潜血陽性。

家族歴: 特記すべきことなし。

既往歴: 10歳, 虫垂炎, 腹膜炎 (保存的に治癒し以後, 右下腹部腫瘤を自覚していた)。

現病歴: 1997年10月, 定期検診で便潜血陽性を指摘され, 当院内科を受診した。大腸内視鏡検査で盲腸腫瘍と診断され, 手術目的で当科に転科となった。

入院時現症: 身長150cm, 体重48kg。血圧128/78mmHg, 脈拍80/分・整。結膜に貧血・黄疸を認めず。右下腹部に弾性硬, 辺縁整な結節状の腫瘤を触知した。肝・脾および全身の表在リンパ節は触知しなかった。

入院時検査所見: 血液・生化学検査では特に異

常所見を認めなかった。腫瘍マーカーはCEA 1.5 ng/mlと正常範囲内であった。

腹部単純X線写真：右骨盤内に3個の円形石灰化像を認めた。

腹部CT所見：盲腸部に連続する辺縁明瞭で石灰化を伴う球形の腫瘤像を認めた (Fig. 1)。

注腸造影所見：盲腸に辺縁整、半球状の圧排像を認めた。

大腸内視鏡検査：盲腸の虫垂開口部周囲に辺縁がやや不整な潰瘍を認め、潰瘍底には乳頭状腫瘤を認めた (Fig. 2)。乳頭状腫瘤からの生検では扁平上皮、潰瘍からは高分化型腺癌、潰瘍周囲粘膜からは管状腺腫と各々診断された。盲腸癌に加え、画像所見上の石灰化と生検での扁平上皮の所見から盲腸奇形腫と診断し、開腹術を施行した。

手術所見：腹部正中切開で開腹すると、右卵巢は硬くやや腫大し、盲腸の漿膜面と強固に癒着していたため、回盲部切除および右卵巢切除、2群リンパ節郭清を施行した。

摘出標本所見：卵巢腫瘍は5×5 cm大で表面平滑であった (Fig. 3a)。剖面では毛髪、黄色充実性部分、石灰化部分が混在していた (Fig. 3b)。卵巢腫瘍は盲腸漿膜面に癒着しており、盲腸粘膜面には潰瘍

が形成され、潰瘍底に毛髪が認められた (Fig. 4)。

病理組織学的所見：卵巢腫瘍は盲腸の筋層を分断し一部粘膜に達しており、骨、軟骨、気管粘膜、皮膚組織に分化した成熟奇形腫と診断された。奇形腫由来の表皮および気管支粘膜で覆われた盲腸粘膜に高分化型腺癌が認められた (Fig. 5, 6)。リンパ節転移は認められなかった。術後経過は良好で術後14日で退院し、術後5年を経過した現在まで再発の徴候を認めていない。

考 察

卵巢奇形腫は卵巢胚細胞腫瘍のなかでは最も高頻度に遭遇する良性腫瘍である。その合併症としては茎の軸捻転が最も多く、その16%に認められ、腹腔内破裂あるいは隣接管腔臓器への穿通は1.3%と極めて稀である³⁾。消化管に穿通した卵巢奇形腫の本邦報告例は自験例を含めて5例あり⁶⁾、平均年齢は45歳、大きさは2～7.3 cm大、穿通部位は直腸3例、S状結腸1例で自験例のみが右側結腸であった (Table 1)。

卵巢奇形腫が消化管に穿通する機序に関して、Farkouhら⁷⁾は、1) 腫瘍の増大により隣接管腔臓器を圧迫し、栄養障害をきたし、その結果穿通する。2) 腹膜炎などにより炎症性癒着をきたし、この結果として穿通する。3) 悪性変化が生じ、その直接浸潤により穿通する。の3つを挙げてい

Fig. 1 A computed tomography scans showed a well-defined calcified mass in the cecal lesion.

Fig. 2 Colonoscopy revealed the ulcer in the cecal lesion that was pathologically suspected to be adenocarcinoma by the biopsy specimen.

Fig. 3 Resected specimen: The stony hard ovarian tumor, measuring 5×5cm in size, had smooth surface and no adhesion except to the serosa of the cecum (a).
In the cut surface, few small firm white nodules in the soft tissue with hair were observed (b).

a
b

る。自験例は卵巢奇形腫の中でも、石灰化した固い部分と盲腸壁が接しており、奇形腫により盲腸壁が圧迫された可能性はある。また、虫垂炎の既往があり、この時から右下腹部の腫瘤に気づいているが、手術所見で虫垂に異常を認めなかったことから、虫垂炎と診断された時期にすでに卵巢奇形腫が存在し、これが何らかの原因で盲腸壁に炎症性癒着をきたした可能性や、さらに穿通した奇形腫の組織と盲腸粘膜との移行部に高分化型腺癌が認められたことから、卵巢奇形腫の悪性化した部分が盲腸壁に浸潤した可能性も考えられる。以上を考えると上記3つの機序のいずれも否定はできない。

卵巢奇形腫の悪性転化は稀であり、0.8～5.0%

Fig. 4 Resected specimen (mucosal side): We found ulcers with hair in the cecum that continued to the tumor.

Fig. 5 Histological findings showed that the right ovary was adhered to the serosa of the cecum (HE stain, ×2).

とされている。中島⁸⁾の集計では成熟奇形腫例の平均年齢が32歳であるのに対して、悪性転化例の平均年齢は57歳であり、自験例のような比較的高齢者に多いことが指摘されている。悪性転化例の病理組織学的分類では、扁平上皮癌が大多数を占

Fig. 6 Histological findings (HE stain,×40): Teratoma had differentiated into mature bone, cartilage, dermal tissue and bronchial epithelium (A). Bronchial mucosa and hair from the teratoma (B) covered parts of the cecal mucosa and submucosal layer.

We found well differentiated adenocarcinoma in the transitional area from teratoma to the cecal mucosa (C). High magnification view of adenocarcinoma (HE×100).

A	C
B	D

Table 1 Reported cases of ovarian teratoma penetrating into the intestine

Autor	age	sex	symptom	location	size(cm)
Inukai	41	f	hematemesis	rectum	2
Oku	37	f	hematemesis	rectum	5.5×4.5×3.0
Sasaki	45	f	abdominal pain	rectum	5.0×4.0×3.8
Hachiya	27	f	hematemesis	sigmoid	7.3×3.0×2.0
our case	75	f	occult blood	cecum	5.0×4.0×2.0

Table 2 malignancy in ovarian teratomas

Author	Stamp ²⁾	Peterson ³⁾	Climie ⁴⁾	Takashina ⁵⁾	
number of cases	24	227	43	51	
squamous cell carcinoma	75	79.3	53.5	74.5	
adenocarcinoma	12.5	6.6	4.7	13.7	
undifferentiated carcinoma	8.3				
carcinoid		2.2	20.9	2	
sarcoma	4.2	8.4	7	2	%

め、腺癌はこれに次ぐとする報告が多い (Table 2)。他には腺扁平上皮癌、肉腫、カルチノイド⁹⁾へ転化した症例も報告されている。扁平上皮癌への悪性化の起源としては、奇形腫の表皮成分が過形成、表皮内癌を経て悪性化する表皮起源説と呼吸上皮等の円柱上皮が扁平上皮を経て悪性化する円柱上皮説があるが、一定の見解は得られていない¹⁰⁾。Carusoら¹¹⁾は305例の卵巢奇形腫を検討し、外胚葉由来の構成成分が99.3%、中胚葉由来が73.3%、内胚葉由来が31.9%に認められ、構造物では皮膚99.3%、脂肪67.4%、軟骨38.6%、神経32.3%の順に多く、消化管上皮は7%に認められたに過ぎないとしている。扁平上皮癌が多いのも、卵巢奇形腫の構造物として皮膚が最多であることに由来すると思われる。一方、腺癌の起源に関しては、汗腺、皮脂腺、唾液腺、甲状腺、乳腺等の報告があるが、起源が不明とされるものも多く、消化管を起源とするものは3例が報告されているに過ぎない¹²⁾¹³⁾。自験例は卵巢奇形腫が穿通した盲腸粘膜と、卵巢奇形腫内の組織との境界部位に腺癌が認められており、この腺癌が盲腸粘膜由来のものか、卵巢奇形腫内の腺組織由来のものかに関しては病理組織学的にも判断が困難であるが、盲腸粘膜と腺癌組織に連続性がないこと、腺癌組織は奇形腫の気管支腺組織、表皮組織に囲まれて存在したことから、卵巢奇形腫内の腺組織から発生したものと考えられる。

卵巢奇形腫の腺癌への悪性転化例において長期生存は期待できないとされていたが³⁾、Uedaら¹³⁾の報告では16例中8例が5年生存を得ており、一概に予後不良とは言えない。自験例は粘膜内にとどまる腺癌で、リンパ節転移も認められなかった。また、卵巢奇形腫は盲腸に穿通してただけで、腹腔内への穿破や他臓器浸潤は認められず、肉眼的根治手術が施行できた結果、術後5年間の無再発生存が得られたと思われた。

おわりに

右卵巢奇形腫が盲腸に穿通した部分に腺癌が発生した極めて稀な1例を経験したので文献的考察を加えて報告した。

参考文献

- 1) 名方保夫, 杉原綾子, 窪田 彬: 腺癌への悪性転化をきたした成熟嚢胞性奇形腫の1例. 日婦病理・コルポスコピー会誌14: 86-90, 1996
- 2) Stamp GWH, Mcconnell EM: Malignancy arising in cystic ovarian teratomas. A report of 24 cases. Br J Obstet Gynaecol 90: 671-675, 1983
- 3) Peterson WF, Prevost EC, Edmunds FT, et al: Benign cystic teratomas of the ovary. A clinico-stastical study of 1007 cases with a review of the literature. Am J Obstet Gynecol 70: 368-382, 1955
- 4) Climie ARW, Heath LP: Malignant degeneration of benign cystic teratomas of the ovary. Review of the literature and report of a chondrosarcoma and carcinoid tumor. Cancer 22: 824-832, 1968
- 5) 高階俊光, 田村 元, 国崎 昭他: 類皮様嚢胞腫の悪性変化 (類皮嚢胞癌) — 自験例2症例の報告と本邦51例の文献的考察. 産婦治療43: 346-357, 1981
- 6) 蜂谷 勉, 小味淵智雄, 樋口 拓他: S状結腸に穿通した卵巢奇形腫の1症例. Gastroenterol Endosc 24: 325-329, 1982
- 7) Farkouh E, Allard M, Paquinn JG: Benign solid teratoma of the ovary with rupture into the rectum. Canadian Journal of Surgery 25: 77-78, 1982
- 8) 中島伸夫: 奇形腫について. 日婦病理・コルポスコピー会誌8: 107-113, 1991
- 9) Sens MA, Levenson TB, Metcalf JS: A case of metastatic carcinoid arising in an ovarian teratoma. Cancer 49: 2541-2546, 1982
- 10) Hirakawa T, Tsuneyoshi M, Enjoji M, et al: Squamous cell carcinoma arising in mature cystic teratoma of the ovary. Am J Surgical Pathology 13: 397-405, 1989
- 11) Caruso PA, Marsh MR, Minkowits S, et al: An intense clinicopathologic study of 305 teratomas of the ovary. Cancer 27: 343-348, 1971
- 12) Fujiwara K, Ginzan S, Silverberg SG: Mature cystic teratomas of the ovary with intestinal wall structures Harboring intestinal-type epithelial neoplasms. Gynecol Oncol 56: 97-101, 1995
- 13) Ueda G, Fujita M, Ogawa H, et al: Adenocarcinoma in a benign cystic teratoma of the ovary: Report of a case with a long survival period. Gynecol Oncol 48: 259-263, 1993