症 例

子宮体部性索様腫瘍の1例

東京慈恵会医科大学附属柏病院病院病理部¹⁾, 同 産婦人科²⁾, 東京慈恵会医科大学附属第三病院病院病理部³⁾

梅澤 敬¹⁾ 野村 浩一³⁾ 山口 裕¹⁾ 春間 節子¹⁾
安田 允²⁾

背景：子宮体部原発のまれな性索様腫瘍の1例を経験したのでその細胞学的特徴を報告する。

症例：75歳，女性，不正出血を主訴に当院を受診した。内膜擦過細胞診ではロゼット様構造を示す円柱状細胞，索状配列の上皮様細胞集塊が出現していた。細胞のN/C比は高く核は小型円形で均一，クロマチンは細顆粒状に分布していた。Class V，神経内分泌性小細胞癌疑いのもと広汎子宮全摘術が施行された。組織学的には，卵巣の性索/間質性腫瘍類似の性索様成分が約90%を占め，これらを取り囲むように低悪性度子宮内膜間質肉腫の増殖がみられ性索様腫瘍と診断された。免疫組織化学的に性索様成分はcytokeratin, vimentin が一部に弱陽性であったがinhibinは陰性であった。

結論：細胞学的にはロゼット様構造，索状配列に出現し，核は小型円形，クロマチンは細顆粒状で均一に分布する点が性索様腫瘍の特徴であった。

Key words : Uterus —— Sex cord-like tumor —— Lowgrade endometrial stromal sarcoma ——
Case report

I. はじめに

卵巣の顆粒膜細胞腫やセルトリ細胞腫類似の性索様成分が子宮内膜間質腫瘍あるいは平滑筋腫瘍の一部にみられることがあるが，まれに性索様分化が大部分を占める子宮腫瘍があり性索様腫瘍として分類されている¹⁾。まれな腫瘍であり²⁻⁵⁾，その細胞像に関する報

告はわれわれが検索した範囲ではみられなかった。今回，子宮体部性索様腫瘍の1例を経験したので細胞学的，組織学的所見を中心に報告する。

II. 症 例

患 者：75歳，女性。

主 訴：3週間持続的不正出血，下腹部痛。

妊娠歴：3妊2産。

既往歴：高血圧，高脂血症。

現病歴：1999年8月，上記主訴で近医を受診し，内膜細胞診でClass III，内膜生検で類内膜腺癌と診断され当院受診となった。当院での内膜細胞診でClass V，神経内分泌性小細胞癌の推定のもと，同年9月，広汎子宮全摘術＋両側付属器摘出術＋骨盤内リンパ節郭清術が施行された。術後，34ヵ月が経過し再発は認めない。

Cytologic features of a sex cord-like tumor of the uterine corpus : A case report

Takashi UMEZAWA¹⁾, C.T., I.A.C., Kouichi NOMURA³⁾, M.D., Yutaka YAMAGUCHI¹⁾, M.D., Setsuko HARUMA¹⁾, C.T., I.A.C., Makoto YASUDA²⁾, M.D.

¹⁾Department of Pathology, ²⁾ Department of Obstetrics and Gynecology, Jikei University, Kashiwa Hospital

³⁾Department of Pathology, Jikei University, Daisan Hospital
論文別刷請求先 〒277-8567 千葉県柏市柏下163の1 東京慈恵会医科大学附属柏病院病院病理部 梅澤 敬

平成13年11月22日受付

平成14年4月12日受理

III. 細胞学的所見

エンドサイトを用いた内膜擦過細胞診では、標本背景は軽度の炎症を呈し壊死はみられなかった。腫瘍細胞はロゼット様構造や索状配列をとって出現し (Photo. 1), 核の molding や重積性を示す乳頭状細胞集塊はみられなかった。索状配列部分は N/C 比が高い細胞からなっていたが (Photo. 1a), ロゼット様構造を示す細胞の胞体はレース状で部分的に円柱状 (Photo. 1b) であった。いずれも核は小型円形で比較的均一、クロマチンは細顆粒状で均一に分布し、数個の小型核小体を認めた (Photo. 2)。摘出材料の腫瘍剖面擦過細胞診所見も上記に類似していたが、ロゼッ

Photo. 1 Endometrial smear specimen showing tumor cells with a trabecular pattern (a : Pap. stain, $\times 20$) and rosette-like arrangement (b : Pap. stain, $\times 100$).

Photo. 2 Sex cord-like tumor cells with small round nuclei and fine, granular chromatin (Pap. stain, $\times 40$). Call-Exner-like body (Inset : Pap. stain, $\times 100$).

ト様構造の中心部にはライトグリーン好染性の Call-Exner-like body (Photo. 2 Inset) や、子宮内膜間質肉腫と思われる紡錘形細胞が一部にみられた (Photo. 3)。nuclear groove はみられなかった。

IV. 摘出材料肉眼所見

子宮体部に限局し、子宮内腔へ向けて外向性発育する 40mm 大の腫瘍がみられた (Photo. 4a)。剖面は黄灰白色調、充実性で一部に大小の嚢胞形成を認め、周囲筋層とは境界明瞭であった (Photo. 4b)。

V. 組織学的所見

腫瘍はセルトリ細胞腫や顆粒膜細胞腫に類似した、索状、管腔状、充実性胞巣状構造をとって増殖していた (Photo. 5, 6)。腫瘍細胞は円形核と明るい淡明～弱好酸性胞体を有する高円柱状であったが (Photo. 6), nuclear groove はみられなかった。胞巣状部分では、好酸性の Call-Exner-like body が多数観察された (Photo. 6a)。これらは PAS 染色に陽性で周囲間質成分との移行像を確認でき顆粒膜細胞腫のものと異なり硝子様物質と考えられた。一部に壊死がみられた。上記の性索様成分を取り囲むように、淡明な胞体と短紡錘形核をもつ低悪性度子宮内膜間質肉腫がシート状に増殖し (Photo. 7)、一部に移行像がみられた。全体の構成は性索様成分が約 90%、子宮内膜間質肉腫成分が約 10% であった。筋層内側 2 分の 1 以内の浸潤であった。両側付属器およびリンパ節への転移は認められなかった。

Photo. 3 Low-grade endometrial stromal sarcoma tumor cells (Pap. stain, $\times 40$).

Photo. 4 Gross appearance of the tumor protruding into the uterine cavity.
a : surface. b : cut surface showing gray-white solid mass with minor cystic areas.

VI. 免疫組織化学的所見

性索様成分は cytokeratin (CAM5.2), vimentin 弱陽性, 子宮内膜間質肉腫成分は vimentin, desmin 弱陽性であった. carcinoembryonic antigen, epithelial membrane antigen (EMA), alpha-smooth muscle actin (α -SMA), muscle actin (HHF35), estrogen receptor, progesterone receptor, および inhibin は両成分とも陰性であった.

VII. 考 察

子宮体部に発生する性索様腫瘍は, 1976 年 Clement と Scully²⁾ が卵巣の性索 / 間質性腫瘍類似の腫瘍を uterine tumors resembling ovarian sex-cord tumors として 14 例報告したのが始まりである. 組織学的に性索様成分は, 卵巣の顆粒膜細胞腫やセルトリ細胞腫類似の形態を示し, 固有間質類似成分は子宮内膜間質腫瘍を示すとされる²⁻⁵⁾. 子宮体癌取扱規約¹⁾では, 性索様成分が大部分を占めるまれな子宮腫瘍と

Photo. 5 Sex cord-like tumor showing trabecular and cord-like arrangements (H-E. stain, $\times 20$).

Photo. 6 a : Sex cord-like tumor composed of columnar cells containing Call-Exner-like bodies (H-E. stain, $\times 40$).
b : Tumor cells forming trabeculae and solid nests (H-E. stain, $\times 40$).

して, その他の腫瘍に分類されている. Clement と Scully²⁾ は間質成分と上皮様成分の多少により Group I, II に分類した. Group I は子宮内膜間質肉腫が優勢で, 多くは再発し予後不良とする群, Group II は性索様成分が優位に増殖し予後良好とする群であ

Photo. 7 Area of low-grade endometrial stromal sarcoma (H-E. stain, $\times 20$).

る。しかし、Group IIでも低悪性度子宮内膜間質肉腫を伴う症例では再発の報告がある³⁾。免疫組織化学的にBakerら³⁾は、desmin (13%), α -SMA (67%)が陽性で約半数は平滑筋の性格を示し、またcytokeratinは73%が陽性、卵巣の性索間質性マーカーであるinhibinは約半数の症例で陽性であるが性索様腫瘍に特異的な所見はみられないと述べている。一方、vimentin陽性の報告もある⁴⁾。

本症例は、組織学的にセルトリ細胞腫や顆粒膜細胞腫に類似する性索様腫瘍が腫瘍面積の約90%を占め、卵巣の性索/間質性腫瘍にきわめて類似する形態であった。性索様成分は、明るい胞体を有する円柱状細胞の充実性胞巣、管状構造、索状配列からなり、Call-Exner-like bodyが特徴的であった。免疫組織化学的に性索様成分はCAM5.2, vimentinが一部に弱陽性を示したが、desmin, α -SMA, HHH35は陰性であり平滑筋の性格は認めなかった。また、inhibinは陰性であった。鑑別診断としてsertoriform endometrioid adenocarcinoma⁶⁾が挙げられるが、子宮内膜間質肉腫成分の存在から除外された。また、同所性癌肉腫とは性索/間質性腫瘍類似の索状配列をとること、EMAに陰性であることから鑑別された。以上から本症例はClementとScully²⁾のGroup II, 規約分類¹⁾の性索様腫瘍に相当すると考えた。

術前の内膜擦過細胞診では、N/C比が高く裸核状の小型細胞がロゼット様構造や索状配列で出現しており、子宮内膜間質肉腫に相当する紡錘形細胞や顆粒膜細胞腫を示唆するnuclear grooveはみられず神経内分泌性小細胞癌を推定した。再検討の結果、ロゼット様構造を示す細胞集塊は部分的に円柱状で細胞質はレー

ス状を示し、組織標本での淡明な胞体を有する円柱状細胞に相当すると考えられた。一方、N/C比の高い小型細胞からなる索状配列は、組織標本での索状配列に相当すると考えられた。いずれもクロマチンは微細顆粒状で、核の濃染傾向や核のmoldingはみられず小細胞癌とは異なる細胞像であった。類内膜腺癌との細胞学的鑑別点は、ロゼット様構造、索状配列の出現パターンが主体で、重積性を示す大型集塊、乳頭状集塊を欠くことであった。

以上、子宮体部原発のまれな性索様腫瘍の1例を報告した。細胞学的特徴は、ロゼット様構造、索状配列に出現し、核は小型円形、クロマチンは細顆粒状で均一に分布する点であった。ライトグリーン好染性のCall-Exner-like bodyや子宮内膜間質肉腫成分をみつけることも重要である。神経内分泌性小細胞癌が細胞学的鑑別診断として最も問題となるが、性索様腫瘍ではクロマチンは細顆粒状に分布し、核の濃染傾向やmoldingを欠くことで鑑別可能である。

本症例の要旨は、第41回日本臨床細胞学会総会(2000年6月、東京)において発表した。

Abstract

Background : We report a rare case of a sex cord-like tumor of the uterine corpus.

Case : A 75-year-old woman was admitted with a complaint of genital bleeding. An endometrial smear specimen revealed atypical cells with rosette-like and trabecular arrangements. The tumor cells had small round nuclei with finely granular chromatin. The cytology specimen suggested small cell carcinoma. Histologically, the tumor was composed predominantly of proliferative cells resembling ovarian sex cord stromal tumor cells and of small areas of low-grade endometrial stromal sarcoma. Structures resembling Call-Exner bodies were observed. An immunohistochemical examination demonstrated that the sex cord-like tumor cells were positive for cytokeratin and vimentin, but negative for inhibin. The tumor was diagnosed as a sex cord-like tumor.

Conclusion : The cytologic features of sex cord-like tumor are rosette-like and trabecular arrangements of atypical cells with small round nuclei and fine, granular chromatin.

文 献

- 1) 日本産婦人科学会, 日本病理学会, 日本医学放射線学会

- 編. 子宮体癌取扱い規約 (改訂第2版). 東京; 金原出版, 1997.
- 2) Clement, P.B., Scully, R.E. Uterine tumors resembling ovarian sex-cord tumors. A clinicopathologic analysis of fourteen cases. *Am. J. Clin. Pathol.* 1976; 66: 512~525.
 - 3) Baker, R.J., Hildebrandt, R.H., Rouse, R.V., Hendrickson, M.R., Longacre, T.A. Inhibin and CD99 (MIC2) expression in uterine stromal neoplasms with sex-cord-like elements. *Hum. Pathol.* 1999; 30: 671~679.
 - 4) Fukunaga, M., Miyazawa, Y., Ushigome, S. Endometrial low-grade stromal sarcoma with ovarian sex cord-like differentiation: Report of two cases with an immunohistochemical and flow cytometric study. *Pathol. Int.* 1997; 47: 412~415.
 - 5) 田中貞夫, 坂江清弘, 清水誠一郎, 中村敬夫, 佐藤栄一. 子宮原発の卵巣性腺間質腫瘍様腫瘍 (uterine tumor resembling ovarian sex-cord like tumor) の一例. *病理と臨床* 1989; 4: 643~649.
 - 6) Eichhorn, J.H., Young, R.H., Clement, P.B. Sertoliform endometrial adenocarcinoma: A study of four cases. *Int. J. Gynecol. Pathol.* 1996; 15: 119~126.
-