症例報告

成熟嚢胞性奇形腫の腹腔鏡下腫瘍核出術の途中で悪性転化を
疑い術式変更した33歳症例—診断上のpitfall—

がん研有明病院

宇津木久仁子、野村秀高、岡本三四郎、勝田隆博、加藤一喜、竹島信宏

A 33-year-old patient with malignant transformation of a mature cystic
teratoma that was diagnosed during laparoscopic cystectomy:
The pitfalls of diagnosisUtsugi Kuniko, Nomura Hidetaka, Okamoto Sanshiro, Katsuda Takahiro,
Kato Kazuyoshi, Takeshima Nobuhiro

Abstract

The preoperative diagnosis of malignant transformation of a mature cystic teratoma is difficult. A 33-year-old woman received laparoscopic cystectomy under the diagnosis of a mature cystic teratoma, and the frozen biopsy result indicated squamous cell carcinoma arising from the mature cystic teratoma. On the same day as the biopsy, we performed right adnectomy, followed by total hysterectomy, left adnectomy, low anterior resection of the rectum, and omentectomy, 1 month after the first surgery. At the second surgery, the tumor had spread to the intra-pelvic cavity, omentum, and biopsy wound scar. Even in patients aged less than 40 years with a tumor size less than 10 cm, we need to check for the presence of squamous cell carcinoma and examine the findings on magnetic resonance imaging thoroughly.

Key words: mature cystic teratoma, malignant transformation, MRI

緒 言

成熟嚢胞性奇形腫のうち、その悪性転化は0.17～2%の頻度である^{1,2)}。発症の多くは40～60歳と言われ、一般に高齢者が多く、診断時には、直腸を含む周囲臓器へ浸潤していることが多く、予後が悪い²⁾。

今回、画像検査結果より成熟嚢胞性奇形腫の診断で腹腔鏡下の核出術を予定していた33歳女性に対し、手術中の迅速病理検査で悪性が疑われたため開腹に移行し右付属器摘出をおこなった。1ヶ月後の再手術時は直腸や大網、腹壁にも転移をし、直腸低位前方切除を伴う手術を施行した。その後の経過と、成熟嚢胞性奇形腫を診断する際の留意点について報告する。

症 例

33歳女性 0妊0産。

既往歴、家族歴：特記すべき点なし

現病歴：前医にて2010年から子宮筋腫と卵巣嚢腫で経過観察されていた。2012年から低容量ピルを処方されている。2014年のMRIでは腫瘍径42mmであった成熟嚢胞性奇形腫が2015年4月には67mmと増大してきたため5月に紹介受診した。内診所見、超音波所見、前医でのMRIより、67x45mmの右成熟嚢胞性奇形腫と診断した。術前腫瘍マーカー値はCA125: 81.8U/ml、CA19-9: 323.6U/ml、AFP: 0.7ng/mlであった。

6月に腹腔鏡下右卵巣腫瘍核出術を試みた。手術所見は、子宮体部にピンポン玉大の筋腫あり。右卵巣腫瘍は鵝卵大で子宮後壁や広間膜後葉と癒

着していた。左卵巢、卵管は正常。腹膜に異常所見なし（図1 a）。手術中腫瘍と周囲組織を剥離していたところ、腫瘍破綻し、黄褐色の脂肪や毛髪を含む液体が腹腔内に流れ出た。腫瘍の内腔に厚く肥厚した組織が観察されたため（図1 b）、生検用の組織を回収袋に収納した。迅速病理の結果、扁平上皮癌との診断であったため、家族に報告した上で、開腹で右付属器摘出をおこなった。腫瘍

摘出後に、腫瘍と癒着していた部分の子宮漿膜と、広間膜後葉を生検したところ、扁平上皮癌の診断であった。

術後すぐにSCCを測定したところ7.1ng/mlと高値であった。最終病理の結果は成熟嚢胞性奇形腫の悪性転化であった（図2 a,b,c）。

7月に2度目の手術前に撮影したPET/CTの結果では、腹腔内播種、直腸浸潤、水尿管、水腎

図1—a

図1—b

図1 鏡視下所見

- a 子宮体部に筋腫が見られる。右卵巢は鰐卵大の嚢胞状であるが、子宮付着部は充実性の発育をしめず。右卵巢は直腸や広間膜後葉と癒着している。右卵管、左付属器は肉眼的に異常なし。
- b 腫瘍剥離の途中で腫瘍壁が破綻し、中から不整に隆起した充実性の腫瘍が観察される。

図2 右付属器摘出材料所見

- a 嚢胞状の腫瘍の一部に黄白色の一樣な充実性部分が見られる（生検提出による切り込みあり）。
- b 嚢胞の内腔を覆う扁平上皮癌とその浸潤像
- c 卵巢実質と角化を伴う扁平上皮癌の浸潤像

図3 2回目の手術前のPET/CT像
1回目の手術で腫瘍を摘出した部位に癌が広がり、その他にも腹膜播種像あり。また右水腎症をみとめる。

症が指摘された(図3)。引き続き7月に再手術をおこなった。腹腔内は直腸がダグラス窩に癒着しており、大網に1.5cm大の転移性腫瘍が1箇所あった。また子宮傍組織に浸潤していた。さらに前回開腹時の創部の筋膜上に1cm大の転移性腫瘍を形成していた。腹水細胞診は陰性であった。単純子宮全摘、左付属器摘出、直腸低位前方切除、大網切除、虫垂切除、腹壁腫瘍摘出を施行した(図4 a,b)。

摘出材料の病理検査では、左卵巣、子宮右側壁、直腸、腹膜、大網を巻き込む扁平上皮癌、右卵巣の成熟嚢胞性奇形腫悪性転化後であった(図4 c,d)。

卵巣癌IVB期(腹壁転移) pT3bNXM1の術後診断のもとで、8月から12月までタキソール、カルボプラチンを6サイクル施行した。2016年1月のPET/CTでは再発所見はなく、水尿管や水腎症も消失した。腫瘍マーカーも正常値である。

考 察

成熟嚢胞性奇形腫は若い女性に多く、腹腔鏡下

図4 2回目の手術の摘出材料
a 右側の子宮傍結合織は硬く直腸と一塊となっている。直腸合併切除を施行。
b 大網に直径1.5cmの転移(矢尻で示す)あり。
c 病理組織で扁平上皮癌が直腸の漿膜側から固有筋層に浸潤している。
d 病理組織で子宮頸部筋層に外膜側から扁平上皮癌が浸潤している。

腫瘍核出術のよい適応である。

今回は当院の経膈超音波所見や前医で撮影したMRIから成熟嚢胞性奇形腫の術前診断のもとで、手術を行った。画像上、良性腫瘍と判断したため、悪性転化の可能性は考慮していなかった。一般に成熟嚢胞性奇形腫の悪性転化は画像上も診断が難しいと言われている^{3,5)}。この症例において後方視的に見ても、MRIで悪性の診断をすることは大変難しいが、病理結果判明後にMRIを再読影すると、悪性を疑わなくてはならない所見がいくつか挙げられる(図5 a,b,c,d)。1. まず、1年で腫瘍径(嚢胞部分)が42mmから67mmとサイズが増大している。2. 卵巣の正常部分と判断したT2WIでやや高信号、内部に嚢胞を含む充実部分は、正常の卵巣にしてはやや大きく、拡散強調画像で強い拡散低下を有している。この充実部分を含めると腫瘍径は83mmであった。3. 右卵巣腫瘍であるのに、病変が子宮の左に偏位しており、悪性転化に

よる周囲との浸潤を疑わせる点である。また、良性腫瘍と考え、術前にSCCを測定していなかったが、SCCの測定は悪性転化の診断に役にたつと報告されており、術後に測定したSCCは高値を示していた^{6,7)}。逆に良性と診断した理由としては、1. 33歳と悪性転化の好発年齢ではないこと、2. 嚢胞部分の腫瘍径が67mmであり、通常悪性転化は腫瘍径が10cmを超えるものに多いという報告に反していること^{2,8-10)}、3. 充実性部分と嚢胞部分の境界がスムーズで、充実性部分が外向性に発育していたため、充実性部分を正常卵巣組織と判断したこと、である。3. に関してはMRI画像上も嚢胞部分と腫瘍部分の境界は突出したものから平坦なものまでであるという報告があり、平坦な場合でも注意が必要である^{3,5,11)}。

今回の症例では、1回目の腹腔内所見より、2回目の腹腔内所見が急速に進んでいた。また開腹創の筋膜上に約1cmの転移性腫瘍が発生してお

図5 術前のMRI像の見直し

- 矢状断T2強調画像。子宮には筋腫が2個観察される。子宮の後面に小嚢胞を伴う卵巣が見られる。正常卵巣部分と当初考えていたが、見直すとこの部分が悪性転化の部位であり直腸への浸潤を疑わせる(矢尻で示す)。この時、ダグラス窩に少々腹水が貯留している。
- 水平断T2強調画像。右卵巣が子宮の左側に偏位しており癒着を疑わせる。6x4cmの嚢胞部分は脂肪の存在と液体がみられる。この嚢腫に接して小嚢胞を含む充実性部位(矢尻で示す)がみられる。
- 水平断T1強調脂肪抑制画像。右卵巣の一部は脂肪抑制される。
- 水平断拡散強調画像。嚢胞部分は粘稠度の高い粘液のため、強く拡散低下している。また、小嚢胞を含む充実部分も拡散低下しており(矢尻で示す)、この部位が悪性であることが示唆される。

りIVB期と診断した。癌細胞の悪性度の高さ、転移能の高さを伺わせる。1回目の手術が腹腔鏡でよかったがどうかについては、最初から開腹したとしても、子宮や広間膜との癒着を剥離している途中で腫瘍破綻した可能性は高く、また、迅速病理に提出しなければならないので、いずれにせよ腫瘍の破綻は診断に必至であったと考える。成熟嚢胞性奇形腫は直腸に浸潤することが多いため、根治性を高めるには生検で悪性転化を確認できたらそのまま直腸低位前方切除を含めた一次的な手術をすることが望まれる。若い女性の成熟嚢胞性奇形腫の悪性転化症例を二期的に手術を行う場合は、その間に病勢が進行することを念頭に置いておかなければならない。

良性の術前診断で手術した患者が術後に悪性が判明した場合、心理的ショックが多いため、若い女性の成熟嚢胞性奇形腫でも、悪性転化や未熟奇形腫などの可能性についてよく術前に検討するとともに、悪性の可能性についても説明しておく必要があると考えられた。

ま と め

33歳女性の成熟嚢胞性奇形腫の悪性転化を経験した。成熟嚢胞性奇形腫は良性卵巢腫瘍の代表的な腫瘍であるが、悪性転化との鑑別は術前の画像では必ずしも容易ではなく、また悪性転化は高齢者が多いため、若年者では見逃されてしまうことがある。成熟嚢胞性奇形腫の悪性転化は悪性度が高く、進行しやすいため、成熟奇形腫の診断時は、年齢に関わりなく常に悪性転化も視野にいれることが必要である。特にSCC高値、腫瘍の急激な増大、MRIで周囲組織との癒着や浸潤を疑わせる所見、拡散低下が鑑別診断に有用であると考えられる。

謝 辞

当症例報告の病理学的指導を頂いた、がん研究会病理部 高澤 豊先生に感謝いたします。

文 献

- 1) Comerci JT, et al.: Mature Cystic Teratoma: A Clinicopathologic Evaluation of 517 Cases and Review of the Literature. *Obstet Gynecol* 1994; 84: 22-28.
- 2) Scully RE. : Teratomas (Excluding monodermal). In *Tumors of the ovary, maldeveloped gonads, fallopian tube and broad ligament* (ed. Scully RE et al). 1996; 23: 267-284, Armed Forces Institute of

Pathology, Washington D.C.

- 3) 田中優美子: 奇形腫、産婦人科の画像診断、2014; 373-379、金原出版.
- 4) Park SB, et al.: Preoperative diagnosis of mature cystic teratoma with malignant transformation: analysis of imaging finding and clinical and laboratory data. *Arch Gynecol Obstet* 2007; 275: 25-31.
- 5) Kido A, et al.: Dermoid cysts of the ovary with malignant transformation : MR appearance. *American Journal of Roentgenology* 1999; 172: 445-449.
- 6) Miyazaki K, et al.: Clinical usefulness of serum squamous cell carcinoma antigen for early detection of squamous cell carcinoma arising in mature cystic teratoma of the ovary. *Obstet Gynecol* 1991; 78: 562-566.
- 7) Mori Y, et al.: Preoperative diagnosis of malignant transformation arising from mature cystic teratoma of the ovary. *Gynecol Oncol* 2003; 90: 338-341.
- 8) Kikkawa F, et al.: Diagnosis of squamous cell carcinoma arising from mature cystic teratoma of the ovary. *Cancer* 1998; 82: 2249-55.
- 9) Futagami M, et al.: Can malignant transformation in mature cystic teratoma be preoperatively predicted? *Eur J Gynecol Oncol* 2012; 33: 662-665.
- 10) Pooja Srivastava, et al.: Squamous cell carcinoma arising in mature cystic teratoma with sigmoid invasion. *J Cancer Research and Therapeutics* 2015; 11:1024.
- 11) Park SB, et al.: Preoperative diagnosis of mature cystic teratoma with malignant transformation: analysis of imaging findings and clinical and laboratory data. *Arch Gynecol Obstet* 2007; 275: 25-31.