

## 卵巣粘液性嚢胞腺腫の3例（良性型、境界悪性型）

大津赤十字病院 小児外科<sup>1)</sup>、同外科<sup>2)</sup>、同放射線科<sup>3)</sup>、同病理部<sup>4)</sup>

岩崎 稔<sup>1)</sup> 平良 薫<sup>2)</sup> 小林 久人<sup>3)</sup> 雑賀 興慶<sup>4)</sup>

Three cases of ovarian mucinous cystadenoma (benign, borderline malignancy)

Minoru IWASAKI<sup>1)</sup>, Kaoru TAIRA<sup>2)</sup>, Hisato KOBAYASHI<sup>3)</sup>, Tatsuyoshi SAIGA<sup>4)</sup>

Departments of Pediatric Surgery<sup>1)</sup>, Surgery<sup>2)</sup>, Radiology<sup>3)</sup>, Clinical Pathology<sup>4)</sup> Japanese Red-Cross Otsu Hospital

Key words: 思春期、卵巣粘液性嚢胞腺腫、上皮性悪性新生物、境界悪性型腫瘍、卵管・卵巣切除術

### 要 旨

初潮発来前後の年齢時期に発生した、卵巣粘液性嚢胞腺腫の3例を経験した。2例は初潮後に発生した、良性の卵巣粘液性嚢胞腺腫であり、他の1例は、初経前に発生した境界悪性型の卵巣粘液性嚢胞腺腫であった。思春期の少女に発生した表在型上皮性卵巣腫瘍は稀であり、初経前の発生は極めて稀である。文献検索によると、初潮発来前後の少女に発生した卵巣粘液性嚢胞腺腫は25例存在した。初潮前の症例は14例で、その内、4例が境界悪性型腫瘍として報告されていた。我々は画像評価と病理組織学的診断根拠に基づいて、少女に発生した3例の卵巣粘液性嚢胞腺腫（良性：2例；境界悪性型：1例）の臨床経験を報告する。

### I はじめに

16歳未満の少女に発生するすべての腫瘍のうち、卵巣腫瘍は2%未満に過ぎない。卵巣腫瘍の20%未満が卵巣表面の上皮細胞由来であると報告されている<sup>1)</sup>。卵巣の粘液性腫瘍は、主に中年に発生するが、初経前の発生は極めて稀である<sup>1)</sup>。左卵巣より発生した、腹部に巨大腫瘤を認めた初潮発来前後の3症例を報告する。病理組織学的検査の結果、2例は粘液嚢胞性良性腫瘍（初経後）で、1例は境界悪性型粘液嚢胞性腫瘍（初経前）であった（表1）。

### II 症 例

#### 【症例1】

13歳4か月の女子で、当院来院前の約1か月前から、腹痛を伴わない腹部膨隆に気付いていた。既往歴に特記事項はなく、入院時にはすでに定期的に生理はあった。入院時の理学所見では、下腹部に弾性硬の腫瘤を触知した以外、特に異常はなかった。腫瘍マーカーを含む血液検査は正常であった。MRIや腹部超音波検査による画像検査では、左卵巣より発生した大きな粘液性腫瘍と診断した（図1A）。

開腹すると腹水は認めず、恥骨結合部から臍上部にまでおよぶ腫瘤を認めた。腫瘍は左卵巣より発生したものであった。腹腔内をさらに検索すると、腹膜播種やリンパ節腫脹などは認めず、対側の卵巣は正常であった。患側の腫瘍を含めた卵巣および付属器を含めた合併切除を施行した（図1B）。腫瘍内より採取した液体の細胞診は、クラスIIで悪性所見なしと診断した。病理組織学的所見は、正常の上皮性細胞を含む多嚢胞からなる粘液性嚢胞腺腫であった（図1C）。術後経過は良好で、術後9日目に退院となった。その後、9年経過しているが、再発徴候はなく経過良好である。

#### 【症例2】

症例は13歳7か月の少女で、受診の4か月前から腹痛を伴わない腹部膨満を認めていた。しかし

Table 1. Present cases of ovarian mucinous cystadenoma in perimenarchal girls

Case No.	Age (yr)	Imaging study	Size (cm)	Weight (g)	Volume (mL)	Treatment	Menstruation	Histology
1	13.3	MRI, US	9 × 11 × 15	1,330	-	SPO	postmenarche	benign
2	13.6	CT, US	14 × 17 × 7	-	2,000	oophorectomy	postmenarche	benign
3	13.0	CT, US	21 × 15.5 × 7	1,120	2,600	oophorectomy	premenarche	borderline

MRI : magnetic resonance imaging ; CT : computed tomography ; US : ultrasound scan

SPO : salpingo-oophorectomy

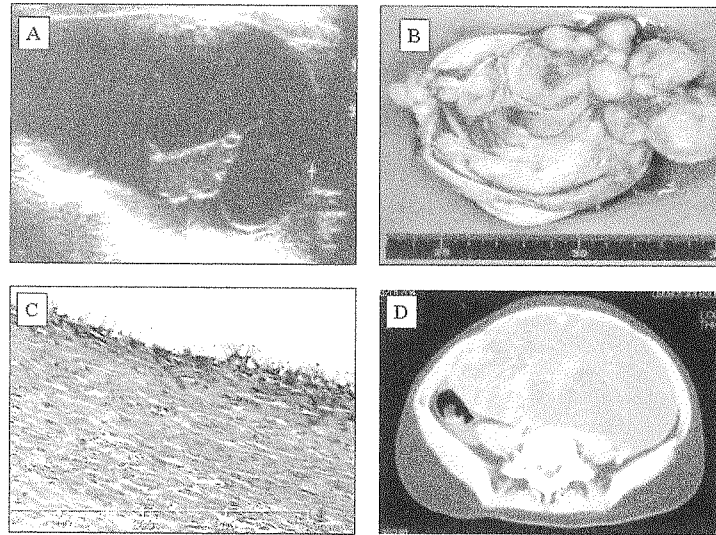


図1A. 症例1で施行した超音波検査所見、大きな多房性の嚢胞性腫瘍を示す。

図1B. 症例1で摘出した標本の断面は、多嚢胞性病変であった。

図1C. 症例1の病理組織学的所見は、正常の上皮細胞を含んだ多発性の嚢胞からなる良性の粘液性嚢胞腺腫であった。(Hematoxylin and eosin staining, original magnification × 100) .

図1D. 症例3における腹部造影CT検査所見。腫瘍は骨盤腔全域を占める大きな多房性嚢胞性病変であり、腫瘍の内腔には明確な中隔が存在しステンドグラス様であった。

彼女の既往歴に特記事項はなく、全身状態は良好であった。入院時の理学所見では腹部膨満以外に異常所見はなく、腫瘍マーカーを含む血液検査にも異常はなかった。患者にはすでに定期的に生理はあった。腹部超音波検査やCT検査による画像評価では、左卵巢から発生した多房性の嚢胞腫瘍を指摘するも、石灰化や脂肪要素は認めなかった。

開腹所見では、多少腹水を認めたが、右卵巢は正常であった。しかし、左卵巢の嚢胞領域においては、不整な外部表面を呈していた。正常卵巢細胞を認めなかったが、付属器は正常であったため、左卵巢切除のみを施行した。手術中に施行した卵巢内腔より穿刺吸引した溶液の細胞診には、悪性所見を認めなかった。病理組織学的所見では、一部の構造に異型を伴った粘液性円柱上皮と骨形成を認めた。しかし核の層形成、細胞異型、間葉系細胞の浸潤などは認めなかった。患者の術後状態

に問題はなく、術後7日目に退院した。その後、6年が経過したが著変なく経過良好である。

### 【症例3】

症例は初経前の13歳の少女である。7か月前から次第に腹囲が増大し、来院時には下腹部痛と高度の腹部膨満を呈していた。血液検査は、CRPの上昇以外は正常であった (7.1 mg/dL; WBC: 9,900 / $\mu$ L)。腫瘍マーカーでは、AFPや $\beta$ -HCG、CEAは正常であったが、CA 125とCA 19-9の上昇を認めた (CA 125: 184.0 U/mL ; CA 19-9: 330.0 U/mL)。超音波検査やCT検査では、左卵巢の内腔がステンドグラス様の画像を呈し、多房性嚢胞腫瘍を明確にした。しかし、両側の水腎症や尿管は認めなかった (図1D)。さらにドプラエコーでは、捻転による左卵巢への血流障害は認めなかった。左卵巢腫瘍は骨盤腔内のすべてを占拠して

いたが、石灰化は認めなかった。さらに追加したCT検査では、腹部や胸部に転移性腫瘍は認めなかった。

下腹部横切開にて開腹したところ、左卵巣から発生した巨大腫瘍を認め、180度反時計方向に捻転していたが、梗塞徴候は認めなかった（図2A）。右卵巣と両側の付属器は正常であったので、左卵巣切除を行なった。また後腹膜、腹膜、大網は正常でリンパ節の腫脹は全く認めなかった。さらに、腹膜偽粘液腫による腹膜播種の危険性を除外するため、付加的虫垂切除術を追加した。なお、虫垂は肉眼的にみて、病的意義は皆無であった。腫瘍内腔より得た液体の細胞診では、悪性細胞は認めなかった。腫瘍の断面は赤褐色で、粘液を含んだ様々な大きさの嚢胞が多数あり、小さな充実性領域が交互に存在していた（図2B）。顕微鏡的所見では、繊細な線維血管性の芯を有する乳頭状の増殖が随所にみられた。偽重層化はみられるものの、上皮細胞の多層化や核分裂数、核異型は軽度であった。破壊性間質浸潤は明らかではないが、10%以下の領域に境界悪性部分を含む粘液性嚢胞腺腫を認めた（図2C）。なお虫垂は正常であった。

患者は退院後も定期的に検査し、CA 125やCA 19-9は術後1か月以内に正常化した。手術後2か

月ごろより初潮を認め、以後定期的に生理を認めている。なお血液検査による卵巣機能は正常範囲内であった（図2D）。

### III 考 察

卵巣の粘液性嚢胞腺腫は一種の上皮性新生物であり、一般に成人女性によくみられる。すべての卵巣腫瘍の60 - 70%を占める比較的よく遭遇する腫瘍である。しかし、小児や思春期の卵巣腫瘍の多くは、発生学的に非上皮性で、胚細胞性腫瘍が優位であり、上皮性腫瘍はおよそ15-20%である<sup>2)</sup>。15歳未満の小児における卵生腫瘍は稀でその発生率は、10万人に2,6人の割合で<sup>3)</sup>、初経前の腫瘍はさらに極めて稀である。文献検索にて我々が知り得た限りでは、初経前後の良性の粘液性嚢胞腺腫は、僅か25例の報告があり、初経前の症例は14例であった。さらに境界悪性型の粘液性嚢胞腺腫は自験例を含めて5例のみであった（表2）。

超音波検査やCT検査は、腫瘍の形状や転移性病変の評価に有用である。画像評価に基づく良性の粘液性嚢胞腺腫に、超音波検査やCT検査でステンドグラス様の画像が得られた場合には、境界悪性型腫瘍の可能性ある。さらに腫瘍マーカーのCA 125やCA 19-9は、境界悪性型卵巣粘液性腫瘍

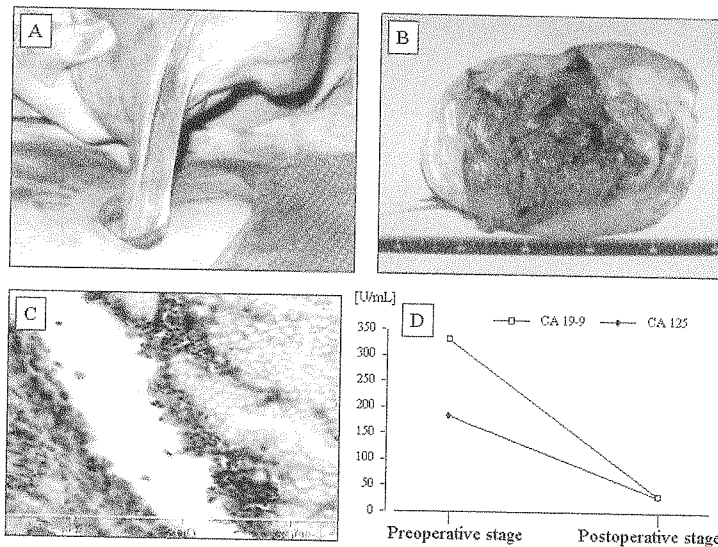


図2A. 左卵巣の粘液性嚢胞腺腫による腫瘍を骨盤腔内から摘出した。しかし、左卵管は正常であった（症例3）。  
 図2B. 症例3で摘出した標本の断面は赤褐色で、粘液を含んだ様々な大きさの嚢胞が多数あり、小さな充実性領域が交互に存在していた。  
 図2C. 症例3の病理組織学的所見では、各嚢胞は主として異型に乏しい粘液上皮に覆われ、繊細な線維血管性の芯を有する乳頭状の増殖が随所にみられた。偽重層化はみられるものの、上皮細胞の多層化や核分裂数の増加は軽度であった。一部に軽度の核異型がみられるも、破壊性間質浸潤は明らかではなかった。一部に境界悪性部分を含む粘液性嚢胞腺腫と診断した（Hematoxylin and eosin staining, original magnification × 100）。  
 図2D. 症例3における腫瘍マーカーCA 125とCA 19-9の手術前後の推移を示す。

Table 2. Ovarian mucinous cystadenoma of borderline malignancy in premenarchal girls

Authors Presented Chronologically	Age (yr)	Imaging Study	Surgical Site	Surgical Treatment	Size (cm)	Weight (g)
Hart WR. et al (1973) <sup>4</sup>	9	-	-	-	-	-
Deprest J. et al (1992) <sup>5</sup>	12	US, CT	left	SPO	16	630
Flotho C. et al (2001) <sup>6</sup>	15	US, MRI	right	SPO	40 × 20 × 20	6,800
Stankovic Z. et al (2006) <sup>7</sup>	12.5	-	right	SPO	-	-
Present study (Case No.3)	13	US, CT	left	oophorectomy	21 × 15.5 × 7	1,120

US : ultrasound scan ; CT : computed tomography ; MRI : magnetic resonance imaging

SPO : salpingo-oophorectomy

の特異的マーカーと考える。

良性や境界悪性型の卵巣粘液性嚢胞腺腫に対する外科的治療は、低侵襲性手術が主体となり、卵管卵巣切除術や卵巣切除術を行う。特に小児や思春期の卵巣手術では、術前の画像評価や手術中の検索で、対側卵巣が肉眼所見で正常と判断したなら、不用意な卵巣生検や卵巣部分切除が、処置後の卵巣周囲の癒着形成も含めて、将来の妊孕性に障害を惹起させることにもなり、安易な対側卵巣の処置は慎むべきである。

粘液性嚢胞腺腫は大きな嚢胞性腫瘍であり、多房性で粘着力のあるゼラチン様の液体を含んでいる。良性や境界悪性型の粘液性嚢胞腺腫や粘液性嚢胞腺癌の診断基準は、顕微鏡的評価に基づいて以下に3つの項目を掲示する<sup>4)</sup>。

[1]. 良性の粘液性嚢胞腺腫は、核の層構造や間質への浸潤は存在しない。

[2]. 境界悪性型の粘液性嚢胞腺腫には、核の層構造は2層または3層まで形成されているが、間質層への浸潤は存在しない。

[3]. 粘液性嚢胞腺癌は、間質層への浸潤があるかもしくは核の層形成が3層以上形成されている。

卵巣の粘液性嚢胞腺腫の予後は良好であるが、5-10%に悪性への転化があり、注意深いフォローアップが重要となる。さらに腫瘍の完全切除が不可能だった症例では、特に再発も懸念され定期的な画像検査が必要となる。良性の粘液性嚢胞腺腫の発生率はすべての卵巣腫瘍の15%で、一般に片側のみに発生するが両側に発生する割合は、10%未満である<sup>8)</sup>。さらに、境界悪性型の同時両側発生率は、8%程度である<sup>4)</sup>。卵巣腫瘍は巨大腫瘍にも関わらず無症候性のこともあり、初潮前に発

生した境界悪性型の卵巣粘液性嚢胞腺腫は極めて稀である。少女の下腹部に膨隆を認めた場合には、まず卵巣腫瘍を念頭におき、超音波検査やCT検査にて腫瘍の性状を検討し、卵管卵巣切除術や卵巣切除術による治療が勧められる。術後のフォローアップでは、超音波検査とMRI検査を併用した長期の経過観察が必要となる。さらに、思春期の卵巣腫瘍の臨床資料を収集することで、卵巣腫瘍に対する治療のガイドラインの早期作成が望まれる。

## 文 献

1. Sri Paran T, Mortell A, et al. Mucinous cystadenoma of the ovary in perimenarchal girls. *Pediatr Surg Int*, 22 : 224-227, 2006.
2. Grapsa D, Kairi-Vassilatou E, et al. Ovarian mucinous cystadenoma with extended calcification in an 11-year-old girl: case report and review of the literature. *Clin Exp Obstet Gynecol*, 33 : 181-182, 2006.
3. Lindfors O. Primary ovarian neoplasms in infants and children: a study of 81 cases diagnosed in Finland and Sweden. *Ann Chir Gynaecol Fenn Suppl*, 177 : 1-66, 1971.
4. Hart WR, Norris HJ. Borderline and malignant mucinous tumors of the ovary: histologic criteria and clinical behavior. *Cancer*, 31 : 1031-1045, 1973.
5. Deprest J, Moerman P, et al. Ovarian borderline mucinous tumor in a premenarchal girl: review on ovarian epithelial cancer in young girls. *Gynecol Oncol*, 45 : 219-224, 1992.

6. Flotho C, R?ckauer K, et al. Mucinous cyst adenoma of the ovary in a 15-year-old girl. J Pediatr Surg., 36 : 1-3, 2001.
7. Stankovic Z, Djuricic S, et al. Epithelial ovarian tumors and CA125 in premenarchal girls. Eur J Gynaecol Oncol., 27 : 597-599, 2006.
8. Poole TR. Mucinous cystadenomas of the ovary: Analysis of cases at Charleston Area Medical Center, Memorial Division. W Virg Med J., 75 : 35-38, 1979.