

ロボット支援下子宮全摘出術後に診断された Uterine tumor resembling ovarian sex cord tumor (UTROSCT) の一例

大森由里子・関根 仁樹・宮原 新・伊勢田侑鼓・藤田真理子・宇山 拓澄
野村 有沙・榎園 優香・中本 康介・森岡 裕彦・寺岡 有子
野坂 豪・友野 勝幸・山崎 友美・向井百合香・古宇 家正・工藤 美樹

広島大学病院 産科婦人科

Uterine tumor resembling ovarian sex cord tumor (UTROSCT) diagnosed after robot-assisted total hysterectomy

Yuriko Oomori・Masaki Sekine・Shin Miyahara・Yuko Iseda・Mariko Fujita・Takuto Uyama
Arisa Nomura・Yuka Enokizono・Kosuke Nakamoto・Hirohiko Morioka・Yuko Teraoka
Suguru Nosaka・Katsuyuki Tomono・Tomomi Yamazaki・Yurika Mukai・Iemasa Koh・Yoshiki Kudo

Department of Obstetrics and Gynecology, Hiroshima University Hospital

Uterine tumor resembling ovarian sex cord tumor (UTROSCT) は、卵巣性索間質腫瘍と類似した組織形態を示す、稀な子宮腫瘍である。UTROSCTの多くは良性の経過をたどるとされるが、再発や転移を認める報告もある。今回、ロボット支援下子宮全摘出術後に診断されたUTROSCTの一例を経験したので報告する。症例は63歳、3妊1産。数日間持続する不正性器出血を主訴に前医を受診し、2 cmの子宮腫瘍を認めたため、当科へ紹介となった。骨盤部造影MRI検査では、子宮体部筋層内から粘膜下に類円形の腫瘍を認め、富細胞性筋腫または低悪性度子宮内膜間質肉腫を疑う所見であった。悪性腫瘍の可能性が否定できず、不正性器出血の症状を伴うため子宮摘出を行う方針とし、術式決定のために経頸管的針生検を施行した。採取した組織の病理組織診断は類上皮平滑筋腫の像であり、悪性所見を認めなかったため、ロボット支援下子宮全摘出術と両側付属器摘出術を施行した。子宮は細切することなく経腔的に体外へ搬出した。摘出した子宮腫瘍の病理組織診断の結果は、UTROSCTであった。本症例は、術前にUTROSCTを鑑別疾患の一つとしてあげることができなかったが、手術検体を踏まえて針生検の検体を再度観察すると、UTROSCTとして矛盾しない像を認め、術前に評価できた可能性が示唆された。再発や転移の可能性があるため、術前診断にて本疾患を疑うことが重要であり、ロボット支援下手術を含めた術式の選択に関して慎重に判断すべきである。

Uterine tumor resembling ovarian sex cord tumor (UTROSCT) is a rare uterine tumor with histology similar to that of ovarian sex cord tumors. Herein, we report a case of UTROSCT that was diagnosed after robot-assisted total hysterectomy. The 63-year-old patient was referred to our department because of a 2-cm uterine mass. Pelvic contrast-enhanced magnetic resonance imaging revealed a submucosal uterine mass, with imaging findings suggestive of a rich cell myoma or low-grade endometrial stromal sarcoma. Because the patient had symptoms of irregular genital bleeding, hysterectomy was performed. As malignancy could not be ruled out, transcervical needle biopsy was performed to determine the surgical approach. The histopathological diagnosis was epithelioid leiomyoma, which is not a malignant tumor. Robot-assisted total hysterectomy and bilateral salpingo-oophorectomy were performed. The uterus and bilateral uterine adnexa were removed transvaginally, without sectioning. The histopathological diagnosis of the excised uterine tumor was UTROSCT. Reexamination of the needle biopsy tissue revealed findings suspicious for UTROSCT. Owing to the possibility of recurrence or metastasis, it is important to suspect this disease in the preoperative diagnosis, and surgical techniques, including robot-assisted surgery, should be carefully selected.

キーワード：UTROSCT, 子宮筋腫, 卵巣性索間質腫瘍, 経頸管的針生検, ロボット支援下子宮全摘出術
Key words: UTROSCT, leiomyoma, ovarian sex cord tumor, transcervical needle biopsy, robot-assisted total hysterectomy

緒 言

Uterine tumor resembling ovarian sex cord tumor (UTROSCT) は、卵巣性索間質腫瘍と類似した組織

形態を示す、稀な子宮腫瘍である。症例数が少ないため、適切な治療方法や管理方法が定まっていない。画像所見だけでは術前に本疾患を診断することは困難であり、術後の病理組織検査により診断されることが多い。

UTROSCTの多くは良性の経過を辿るが、再発や転移を認めたという報告¹⁾もあるため、術後の経過観察も必要となる。今回、ロボット支援下子宮全摘出術を行い、術後に診断されたUTROSCTの一例を経験したので報告する。

症 例

症例は63歳，3妊1産，50歳に閉経した。数日間持続する不正性器出血を主訴に前医を受診した。経陰超音波検査で子宮内に2cmの腫瘤を認めたため，精査加療目的で当科を紹介受診した。子宮頸部細胞診，子宮内膜組織診では異常所見は認めなかった。骨盤部造影MRI検査では，子宮内膜は薄く，子宮体部筋層内から粘膜下に発育する24×20×21mmの類円形の腫瘤を認め，T1強調・T2強調画像はともに軽度高信号であった（図1-A，

B）。拡散強調画像では異常信号を呈し，造影早期相で濃染し，後期相では筋層より低信号で造影剤の排泄を認めた（図1-C，D）。画像上は，富細胞性筋腫または低悪性度子宮内膜間質肉腫を否定できない所見であった。全身検索目的に造影CT検査を行い，リンパ節腫大や遠隔転移を疑う所見は認めなかった。画像上では子宮悪性腫瘍の可能性が否定できず，不正性器出血の症状を伴うため子宮摘出を行う方針とした。鏡視下手術を希望されたため，術式を選択するために経頸管的針生検を施行した。採取した組織の病理組織診断は類上皮平滑筋腫の像であり，悪性所見を認めなかったため，子宮平滑筋腫に対してロボット支援下手術を選択した。経頸管的針生検から1か月後に，da vinci Xi[®]を用いたロボット支援下子宮全摘出術と両側付属器摘出術を施行した（図2-A）。子宮を細切することなく経腔的に子宮と

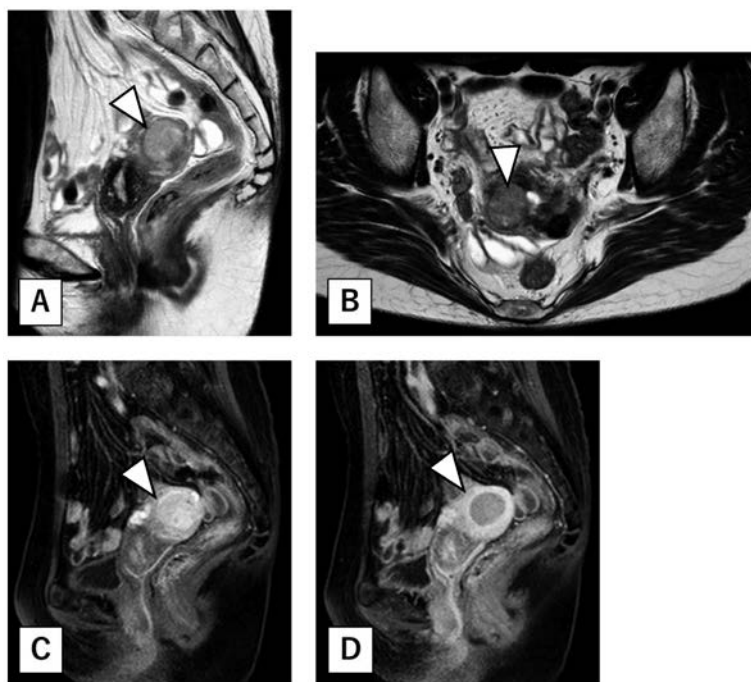


図1 骨盤部造影MRI検査

（A）T2強調矢状断（B）T2強調水平断：子宮体部に筋層内から粘膜下に突出する腫瘍を認め，T2強調像で高信号を呈している（C）造影早期相：腫瘍は濃染している（D）造影後期相：腫瘍内の造影剤は排泄されている

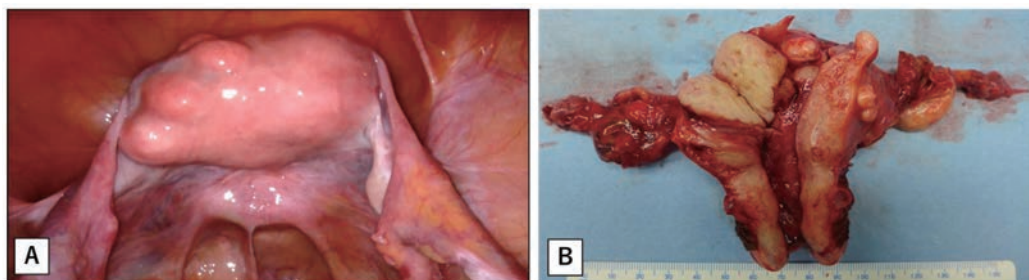


図2 術中写真と摘出標本

（A）ロボット支援下子宮全摘術施行時の骨盤内所見：子宮は鶏卵大で，周囲との明らかな癒着は認めなかった（B）摘出標本：子宮体部前壁に，境界明瞭な黄白色の弾性のある腫瘍を認めた

両側付属器を体外へ搬出した。手術時間は 95 分、コンソール時間は 60 分、術中出血量は 20g であった。摘出した子宮と両側付属器は合わせて 91g で、子宮体部前壁に 2.5cm の弾性のある腫瘤を認め、肉眼的には黄白色で境界明瞭であった (図 2-B)。摘出物の病理組織検査では、子宮体部腫瘍の大部分において、核異型が軽度な細胞がシート状に増殖し、細胞質は乏しく不明瞭な像を認めた (図 3-A, B, C)。免疫組織化学的検査では、calretinin (図 3-D), CD99, ER, PgR, cytokeratin (AE1/AE3), vimentin がいずれも陽性を示した。WT1, inhibin, α -SMA (smooth muscle actin), desmin, caldesmon, S100, CD10, chromogranin A, synaptophysin, EMA, HMB45 は陰性であった。以上の所見は性索間質腫瘍の特徴を示しており、UTROSCT と診断した。手術検体の所見を踏まえて、類上皮平滑筋腫と診断した針生検の組織検体を再度観察すると、上皮

様細胞は充実性で胞巣状に増殖する像を認め (図 3-E), UTROSCT として矛盾しない所見であった。

術後は、再発や転移の報告があることから経過観察の方針とし、現在術後 1 年が経過したが再発を認めておらず、引き続き慎重に経過観察を継続していく。

考 案

UTROSCT は非常に稀な腫瘍であり、その臨床像、診断、術式を含めた治療方法、術後管理や予後についていずれも明確になっていない。本症例から、経頸管的針生検による組織採取によって術前に鑑別疾患の一つとして UTROSCT をあげることが可能だったかもしれないこと、術式に関して適応や工夫によってロボット支援下子宮全摘出術も選択肢となりえることが考えられた。これらについて考察する。

UTROSCT は、卵巣性索間質腫瘍に類似した子宮腫

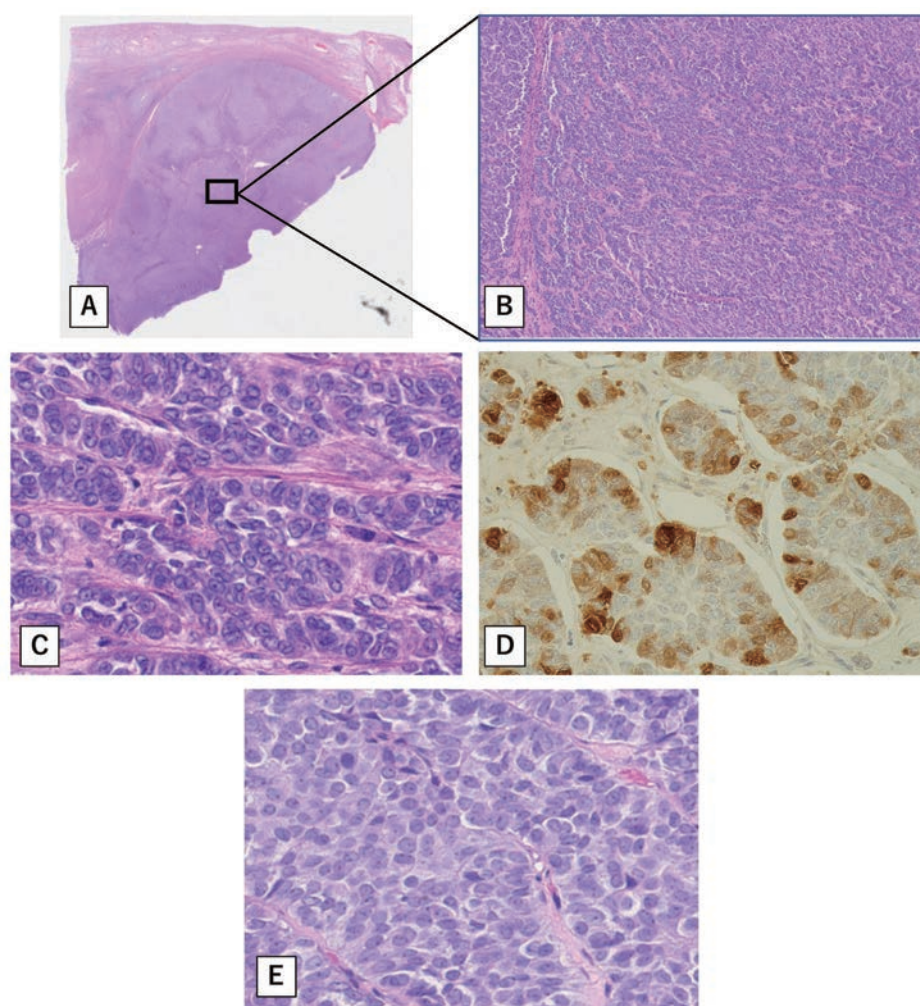


図 3 病理組織標本

(A) ~ (D) 子宮摘出標本 (A) HE 染色・弱拡大 (B) HE 染色・50 倍：腫瘍細胞はシート状に増殖 (C) HE 染色・400 倍：核異型は軽度、細胞質は乏しく不明瞭 (D) 免疫組織化学染色・400 倍：腫瘍細胞は calretinin 陽性 (E) 経頸管的針生検標本の HE 染色・400 倍：上皮様細胞は充実性で胞巣状に増殖

瘍である。1945年に卵巣の顆粒膜細胞腫と形態学的に同一の腫瘍を子宮に認め、性索様分化を伴う子宮腫瘍として最初に報告された²⁾。その後、この卵巣性索間質腫瘍に類似した子宮腫瘍は、腫瘍内の性索間質成分が50%未満で子宮内膜間質腫瘍様の組織像を認める Endometrial stromal tumors with sex cord elements (ESTSCLE) と、性索間質成分が50%以上を占める腫瘍である UTROSCT に分類された³⁾。ESTSCLE は低悪性度子宮間質肉腫に類似した腫瘍として扱われているのに対し、UTROSCT の多くは良性の経過を辿るとされている。しかし、UTROSCT においても再発や転移を認めたという症例報告が散見される。手術後の経過を追えた52症例の検討では、10例(19.2%)に再発を認めたと報告している¹⁾。UTROSCT の転移部位としては、卵巣、腹膜、小腸、腸間膜、骨盤リンパ節、虫垂、肺、皮下組織などの報告がある^{1) 4) 5) 6) 7) 8) 9) 10)}。肺転移と腹腔内転移を認め、診断から9ヶ月後に死亡した症例も報告されている¹⁾。再発や転移に関する複数の報告から良性疾患と同様の管理ではなく、慎重な対応が必要であると考える。そのため、診断や術式選択についても注意が必要である。

UTROSCT は閉経前後の女性に好発するとされるが、90症例の検討報告では、20~86歳(平均年齢は50.6歳)と年齢の幅は広い¹⁾。主な症状は不正性器出血であり、腹部腫瘍感や腹痛を認める症例もある。多くは子宮筋層内、粘膜下、および子宮内腔にポリープ状に発生し、子宮内膜細胞診で疑われた報告はない。また、超音波検査や骨盤部MRI検査などの画像診断における特徴的な所見についてはほとんど報告されていない。そのため、画像診断だけでは術前にUTROSCTを疑うことは困難である。画像診断で子宮筋腫や子宮肉腫を疑い、子宮全摘出術後にUTROSCTと診断される報告が多い。

卵巣性索間質性腫瘍ではホルモンを産生するものも多くあるが、UTROSCT において血中のホルモン値を測定した報告は検索した範囲内では一編のみであった¹¹⁾。本症例では術前にUTROSCTを疑っておらず、ホルモン値を測定していなかった。UTROSCT におけるホルモン産生の有無については不明であり、今後の検討課題と考える。

UTROSCT の病理組織学的な特徴は、腫瘍細胞が小型で、円形から卵形の核を持ち、核の異型は目立たず、細胞質が乏しい。この異型に乏しい上皮様細胞が索状、網状、胞巣状、管状、シート状などの多様な構築をとり、性索間質腫瘍に類似した形態がみられる。また、免疫組織化学染色が有用であり、性索マーカーであるcalretininが陽性となる。これに加えて、inhibin, CD99, Melan-Aなどの性索マーカーのうち少なくとも一つが陽性となる場合にはUTROSCTが強く示唆され

る^{12) 13)}。さらに、上皮性マーカーであるcytokeratin (AE1/AE3) やepithelial membrane antigen, 平滑筋マーカーであるSMAやdesmin, その他のマーカーとしてCD10, エストロゲン受容体(ER), プロゲステロン受容体(PgR), S100, CD117などが陽性となることもある¹²⁾。このように、多様なマーカーの発現を認めることもUTROSCTの特徴であり、本症例も同様であった。また本症例では、p16が腫瘍の20%で、p53が腫瘍の5%未満で染色されていた。再発症例や転移症例では、染色される範囲が異なる可能性があるかもしれない。本症例では、術前の画像診断でUTROSCTを疑うことができず、子宮全摘出術にて摘出した腫瘍の病理組織診断でUTROSCTとして矛盾しない所見を認め診断に至った。また、術前の画像診断で悪性腫瘍を否定できない所見であったことから、術式を選択する目的で経頸管的針生検による組織採取を行った。術前の評価ではUTROSCTの認識がなく、類上皮平滑筋腫と診断したが、術後に再度観察すると上皮様細胞は充実性で胞巣状に増殖する像であり、UTROSCTと疑える所見であった。術前に針生検を行うことでUTROSCTを鑑別診断に挙げることができた症例も報告されている¹⁴⁾。子宮腫瘍に対する経頸管的針生検の有用性については、子宮筋腫と子宮肉腫を鑑別し治療選択に有効であったことや重篤な合併症なく安全に実施できることが報告されている^{15) 16)}。当科でも子宮腫瘍の術前診断が困難で管理に困る場合に経頸管的針生検を行っており、本症例でも選択した。今回の結果から、UTROSCTを知ることで、経頸管的針生検による組織採取によって術前に鑑別疾患の一つとしてUTROSCTをあげることが可能になるかもしれない。一方で、経頸管的針生検に関しては、採取できる組織が小さく、腫瘍径が大きい場合に診断精度が低くなる可能性や腫瘍の位置によっては検査に難渋する場合があることを考慮しておく必要がある。

UTROSCT の治療は、再発や転移の報告もあることから、腹式子宮全摘出術を選択している症例が多く報告されているが、鏡視下手術の報告もある。本症例では術前診断で良性の平滑筋腫と判断し、ロボット支援下子宮全摘出術を行った。結果として腫瘍を含め子宮を細切することなく摘出できたが、症例によっては細切が必要な場合がある。また、妊孕性温存が必要な症例では腫瘍摘出を行うが、UTROSCT に対して子宮を温存した症例では術後の再発もしばしば報告されている^{4) 17)}。そのため、術後はより慎重なフォローアップが求められる。術前にUTROSCTを疑った場合には慎重に術式の選択を行う必要がある。悪性の間葉系腫瘍の場合は腹式子宮全摘出術が望ましいと考えるが、現在のところUTROSCTは多くが良性の経過をたどる疾患として知られており、鏡視下手術も選択肢と考える。しかし再発や転移の報告もある

ことから、ロボット支援下手術を選択する場合には、腫瘍の大きさを含めた症例の選択や、子宮の回収方法の工夫などを考慮する必要がある。術式選択のためにも術前診断は重要であり、経頸管的針生検は有用と考えられ、適切な症例選択を行えばロボット支援下手術も選択肢となる可能性がある。

結 語

ロボット支援下子宮全摘術後にUTROSCTと診断された症例について報告した。UTROSCTは再発や転移の可能性があるので、術前診断にて本疾患を疑うことが重要であり、ロボット支援下手術を含めた術式の選択に関して慎重に判断すべきである。今後も症例集積を行い、診断や治療が確立されることが望まれる。

文 献

- 1) Zhou FF, He YT, Li Y, Zhang M, Chen FH. Uterine tumor resembling an ovarian sex cord tumor: A case report and review of literature. *World J Clin Cases* 2021; 9(23): 6907-6915.
- 2) Morehead RP, Bowman MC. Heterologous mesodermal tumors of the uterus report of a neoplasm resembling a granulosa cell tumor. *Am J Pathol* 1945; 21: 53-61.
- 3) Clement PB, Scully RE. Uterine tumors resembling ovarian sex cord tumors: a clinicopathologic analysis of fourteen cases. *Am J Clin Pathol* 1976; 66: 512-515.
- 4) Liu CY, Shen Y, Zhao JG, Qu PP. Clinical experience of uterine tumors resembling ovarian sex cord tumors: a clinicopathological analysis of 6 cases. *Int J Clin Exp Pathol* 2015; 8(4): 4158-4164.
- 5) Kantelip B, Cloup N, Dechelotte P. Uterine tumor resembling ovarian sex cord tumors: Report of a case with ultrastructural study. *Hum Pathol* 1984; 17(1): 91-94.
- 6) Biermann K, Heukamp LC, Bütner R, Zhou H. Uterine tumor resembling an ovarian sex cord tumor associated with metastasis. *Int J Gynecol Pathol* 2008; 27: 58-60.
- 7) O'Meara AC, Giger OT, Kurrer M, Schaer G. Case report: Recurrence of a uterine tumor resembling ovarian sex-cord tumor. *Gynecol Oncol* 2009; 114: 140-142.
- 8) Umeda S, Tateno M, Miyagi E, Sakurai K, Tanaka R, Tateishi Y, Tokinaga A, Ohashi K, Furuya M. Uterin tumors resembling ovarian sex cord tumors (UTROSCT) with metastasis: clinicopathological study of two cases. *Int J Clin Exp Pathol* 2014; 7(3): 1051-1059.
- 9) Kondo Y, Sakaguchi S, Mikubo M, Naito M, Shiomi K, Ohbu M, Satoh Y. Lung metastases of a uterine tumor resembling ovarian sex-cord tumor: report of a rare case. *Diagn Cytopathol* 2018; 46: 88-91.
- 10) Kimyon Cömert G, Kilic C, Cavusoglu D, Türkmen O, Karalok A, Turan T, Basaran D, Boran N. Recurrence in uterine tumors with ovarian sex-cord tumor resemblance: a case report and systematic review. *Turk Patoloji Derg* 2018; 34: 224-233.
- 11) 勝矢聡子, 樋口壽宏, 寺島剛, 竹内英二, 高倉賢二. 子宮体部原発の性索間質類似腫瘍の1例. *産婦の進歩* 2010; 62(4): 340-344.
- 12) Pradhan D, Mohanty SK. Uterine tumors resembling ovarian sex cord tumors. *Arch Pathol Lab Med* 2013; 137: 1832-1836.
- 13) Irving JA, Carinelli S, Prat J. Uterine tumors resembling ovarian sex cord tumors are polyphenotypic neoplasms with true sex cord differentiation. *Modern Pathology* 2006; 19: 17-24.
- 14) 塩原正規, 伏見聡一郎, 苗村智, 猪飼信康, 堀田真智子, 和仁洋治, 九嶋亮治. 子宮頸部Uterine Tumor Resembling Ovarian Sex Cord Tumor (UTROSCT) の1例. *診断病理* 2020; 37(3): 204-210.
- 15) Kawamura N, Ichimura T, Ito F, Shibata S, Takahashi K, Tsujimura A, Ishiko O, Haba T, Wakasa K, Ogita S. Transcervical needle biopsy for the differential diagnosis between uterine sarcoma and leiomyoma. *Cancer* 2002; 94: 1713-1720.
- 16) Kawamura N, Ichimura T, Takahashi K, Tsujimura A, Ishiko O, Ogita S. Transcervical needle biopsy of uterine myoma-like tumors using an automatic biopsy gun. *Fertil Steril* 2002; 77: 1060-1064.
- 17) 島松一秀, 永山祥代, 岩下弘子, 大橋裕, 畑瀬哲郎. 子宮頸部に原発したuterine tumor resembling ovarian sex-cord tumorの1例. *診断病理* 2003; 20(4): 369-372.

【連絡先】

大森由里子
広島大学病院産科婦人科
〒734-8551 広島県広島市南区霞 1-2-3
電話: 082-257-5262 FAX: 082-257-5264
E-mail: yuomori@hiroshima-u.ac.jp