

## 腹腔鏡下手術施行後に判明した卵巣甲状腺腫性カルチノイドの一症例

三谷 龍史<sup>1) 2)</sup>・佐藤 美紀<sup>1)</sup>・松崎 利也<sup>1)</sup>・正木 理恵<sup>2)</sup>  
米谷 直人<sup>2)</sup>・宮谷 友香<sup>2)</sup>・前川 正彦<sup>2)</sup>・塩見ひろ美<sup>3)</sup>

- 1) 吉野川医療センター 産婦人科  
2) 徳島県立中央病院 産婦人科  
3) しんくら女性クリニック

### A case of stromal carcinoid of the ovary diagnosed after laparoscopic surgery

Ryuji Mitani<sup>1) 2)</sup>・Miki Sato<sup>1)</sup>・Toshiya Matsuzaki<sup>1)</sup>・Rie Masaki<sup>2)</sup>  
Naoto Yonetani<sup>2)</sup>・Yuka Miyatani<sup>2)</sup>・Masahiko Maegawa<sup>2)</sup>・Hiromi Shiomi<sup>3)</sup>

- 1) Department of Obstetrics and Gynecology, Yoshinogawa Medical Center  
2) Department of Obstetrics and Gynecology, Tokushima Prefectural Central Hospital  
3) Shinkura Ladies Clinic

神経内分泌細胞から発生する腫瘍のうち、高分化のものをカルチノイドと呼び、進行が遅く予後良好とされる。カルチノイドは消化管に好発するが、卵巣にも0.5~1.7%の頻度で発生することが知られている。今回、良性卵巣腫瘍の術前診断で腹腔鏡下手術を施行し、術後病理診断にて卵巣成熟奇形種の一部に甲状腺腫性カルチノイドを認めた一例を経験したので報告する。

症例は48歳、未妊婦。甲状腺機能亢進症の既往があったが、寛解していた。がん検診目的にて近医産婦人科を受診した際に卵巣腫瘍を指摘され、精査加療目的にて紹介となった。CT、MRIでは左卵巣甲状腺腫が疑われ、同時に右卵巣に皮様嚢腫も指摘された。腫瘍マーカー（CA125、CA19-9、SCC）は全て正常範囲内であった。両側卵巣腫瘍の診断にて腹腔鏡下手術（左付属器摘出術、右卵巣嚢腫摘出術、右卵管切除術）の方針とした。ポートはダイヤモンド法で配置し、摘出した左付属器及び右卵巣嚢腫は回収バッグに収納して回収した。右卵巣皮様嚢腫摘出時に被膜破綻を認めたが、左付属器は腫瘍を一塊として摘出したため、腫瘍の腹腔内露出は認めなかった。術後病理診断にて右卵巣は成熟奇形種であったが、左卵巣腫瘍は成熟奇形種の一部に甲状腺組織を認め、免疫染色を行ったところ、synaptophysin、chromogranin A、CD56陽性でKi-67指数が2-3%、核分裂像は0-1/10HPFの所見だったためWHO分類でNET: 1相当の甲状腺腫性カルチノイドと診断された。術後に全身検索目的にてPET-CTを追加したが、明らかな転移を示唆する所見は認めなかったため、経過観察とした。現在まで明らかな再発徴候は認めていない。

卵巣甲状腺腫性カルチノイドは境界悪性腫瘍に分類されるものの、予後は良好で局所切除で予後良好だった報告も複数認めている。卵巣腫瘍に対する腹腔鏡下手術では、常に境界悪性以上のリスクを考慮して飛散なく摘出・回収する配慮が必要であることを再認識した。

Ovarian carcinoid tumors are rare borderline malignancies. Herein, we report a case of stromal carcinoid tumor with a mature cystic teratoma which was diagnosed after laparoscopic surgery. A 48-year-old woman was referred to our hospital for a pelvic tumor. Magnetic resonance imaging revealed an 8-cm solid tumor in the left ovary with a cystic part and fatty tissue. A right ovarian dermoid cyst was also detected. Based on the imaging, the left ovarian mass was probably an ovarian struma with low malignant potential. There were no characteristic changes in the tumor markers. We performed a left salpingo-oophorectomy, total laparoscopic cystectomy, and right salpingectomy. Pathological examination confirmed the diagnosis of stromal carcinoma of the left ovary with a mature cystic teratoma. The right ovarian mass was diagnosed as mature cystic teratoma. The patient refused additional surgery and no recurrence was observed. It is imperative that the tumor contents do not leak into the abdominal cavity during surgery, even if a benign tumor is suspected.

キーワード：卵巣甲状腺腫性カルチノイド、境界悪性腫瘍、腹腔鏡下手術

Key words: stromal carcinoid of the ovary, borderline malignancy, laparoscopic surgery

### 緒言

カルチノイドは高分化神経内分泌腫瘍(neuroendocrine tumor: NET) Grade Iに相当する腫瘍とされる<sup>1)</sup>。発生

臓器として直腸、胃、十二指腸、虫垂を含む消化管由来のものが全体の70%を占める<sup>2)</sup>一方で卵巣原発のカルチノイドは0.5~1.7%<sup>3)</sup>と言われ、卵巣腫瘍全体の0.1%以下と非常にまれな腫瘍とされている<sup>4) 5)</sup>。卵巣原発カル

チノイドは若年者から高齢者まで発症が見られ、主に片側性であり、ペプチドYY産生腫瘍では高度な便秘を伴う。甲状腺腫性カルチノイドは卵巣に特有のカルチノイドであり、甲状腺腫及び成熟奇形腫部分、カルチノイド部分、両者が混在する部分を含み、組織学的には境界悪性に分類されている<sup>1)</sup>。

今回、我々は卵巣腫瘍に対して腹腔鏡下手術を施行し、病理診断にて卵巣成熟奇形種に甲状腺腫性カルチノイドを認めた一症例を経験したので文献的考察を含めて報告する。

## 症 例

48歳

身長：164cm 体重：73kg

主訴：骨盤内腫瘍

産科歴：0妊0産

既往歴：甲状腺機能亢進症。当院受診時は寛解しており薬物療法なし。便秘症状に対して近医内科にて緩下薬処方されていた。

家族歴：父，母，姉：糖尿病

月経歴：25日周期，規則的。

月経困難症：腹痛，腰痛あり。

現病歴：

X年に子宮癌検診目的にて近医産婦人科受診。産婦人科受診前に近医内科にて施行した腹部超音波にて子宮筋腫を指摘されたとの訴えがあったため、経膈超音波を施行したところ、子宮後方に充実性を含む卵巣皮様囊腫を疑う所見を認めたため、精査加療目的にて紹介された。経膈超音波所見：子宮左背側に72×59×66mmの充実成分主体の腫瘍を認めた。右付属器領域に60×45mmの皮様囊腫を示唆する腫瘍像を認めた。

骨盤MRI：右付属器にT1強調画像で高信号，T2強調画像で低信号，脂肪抑制画像で信号抑制される腫瘍を認めた。左付属器領域には充実部分と囊胞部分が混在する腫瘍を認め、囊胞部分はT1強調画像で高信号，T2強調画像で低信号，脂肪抑制画像で信号低下を認めた。充実部分はT1強調画像で軽度高信号を呈しており、造影効果は認めしたが、拡散強調画像で信号の低下は認めなかった（図1）。

腹部CT：右卵巣に径6cm弱の主に脂肪成分からなる腫瘍を認めた。左卵巣は脂肪，石灰化を伴う囊胞成分と充実成分が混在しており、充実部分のCT値は筋層とほぼ同等であった。典型的な甲状腺腫と診断できる所見ではなかったが、明らかな悪性を示唆する所見は認めなかつ

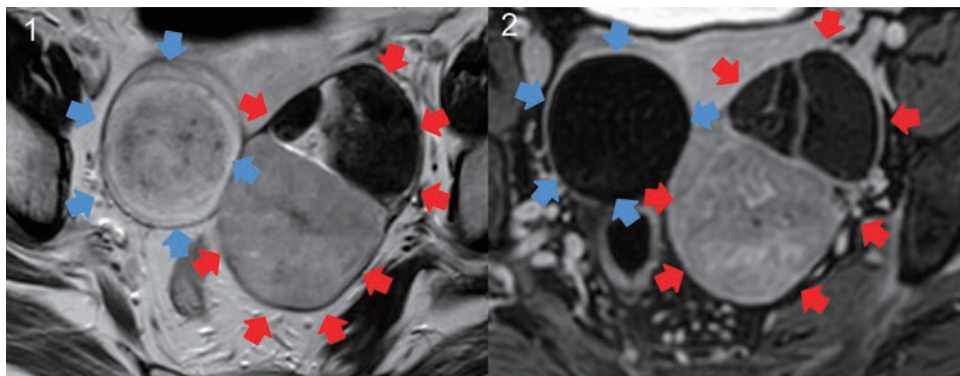


図1 骨盤MRI

1：T1強調画像 2：T1脂肪抑制画像

左付属器領域に充実部と囊胞成分が混在する腫瘍を認めた。囊胞成分はT1高信号，脂肪抑制画像で信号低下を認めた。充実部分はT1で軽度高信号であった。(赤色矢印)

右付属器領域にT1高信号，脂肪抑制画像で信号低下を認める囊胞性腫瘍を認めた。(青色矢印)

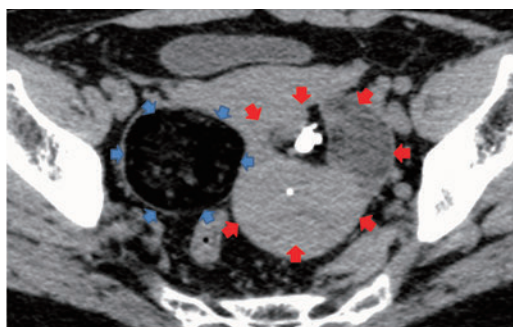


図2 腹部CT

赤矢印内が左付属器領域の腫瘍 青矢印内が右卵巣皮様囊腫

た(図2)。

腫瘍マーカー：CA19-9：22.9 U/mL (0.1 - 37)，  
CA125：23.6 U/mL (2 - 35)，SCC：1.2 ng/mL (1.5以下)

CT，MRIでは右卵巣は皮様嚢腫，左卵巣は皮様嚢腫を伴う甲状腺腫が疑われたため，腹腔鏡下に左付属器摘出術，右卵巣嚢腫摘出術，右卵管摘出術を行う方針とした。

術中所見：全身麻酔下にオプティカル法にて臍部より12mmトロッカーを，ダイヤモンド配置で下腹部に5mmトロッカーを挿入した。7cmの子宮マニピュレーターを挿入した。左卵巣に8cm大の充実成分主体の腫瘤を，右卵巣に6cm大の嚢胞成分主体の腫瘤を認めた。リガシユアメリーランド™を用いてまず左付属器摘出術を行い，EZパース™に収納し，臍部より腫瘍成分を腹腔内に流入させないように袋内で細切しつつ回収

した。続いて右卵巣嚢腫表面にモノポーラにて切開を加え，嚢腫摘出を行い，回収バッグに収納して臍部より回収した。さらにリガシユアメリーランド™を用いて右卵管摘出を行った。右卵巣嚢腫摘出時に一部被膜破綻をきたしたため，腹腔内を十分量の生食にて洗浄して手術を終了した(図3)。

手術時間：2時間28分。出血はごく少量であった。

病理所見：右卵巣嚢腫には皮膚及び皮膚付属器，気管支組織，骨，中枢神経組織を認め，成熟嚢胞奇形腫に一致し，未熟成分，悪性所見は認めなかった。左卵巣腫瘍の充実部は小型円型細胞が索状～管腔構造をとりながら増殖し，一部で充実性増殖を認めた。また腫瘍の一部に甲状腺組織がみられthyroglobulinも一部陽性だった。同部位の免疫組織でsynaptophysin，chromogranin A，CD56が陽性だった。Ki-67指数は2 - 3%程度と増殖能

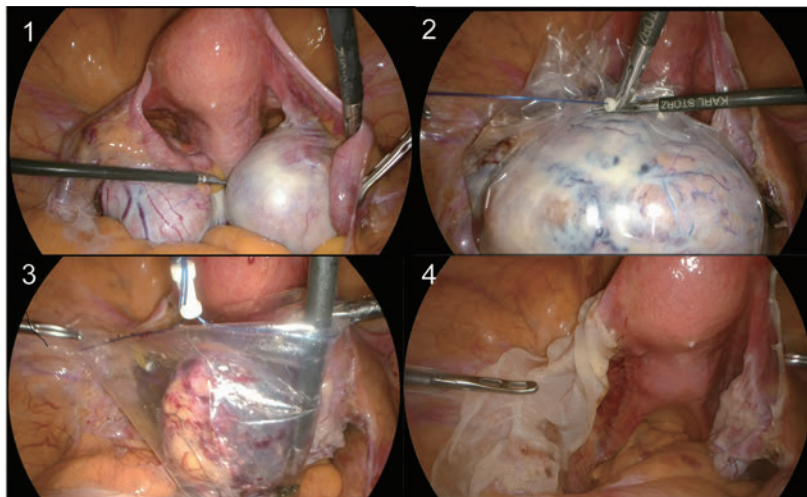


図3 腹腔鏡下手術所見

- 1：手術開始時。
- 2：左卵巣腫瘍摘出後。収納袋に入れて回収。
- 3：右卵巣嚢腫摘出後。収納袋に入れて回収。
- 4：手術終了時。

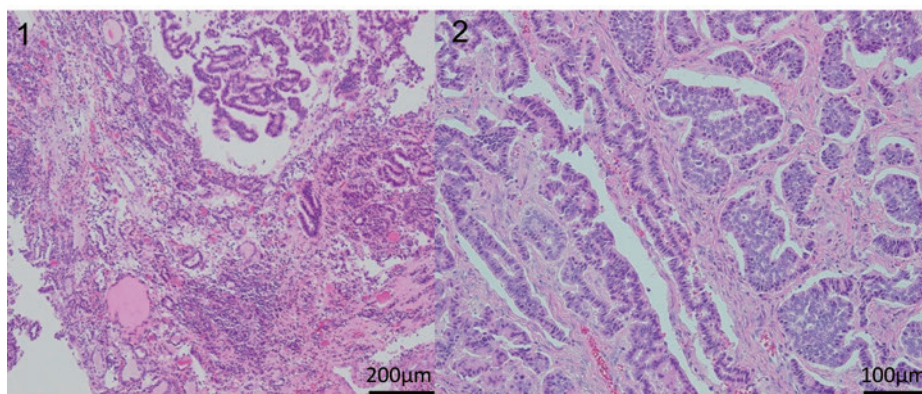


図4 病理組織検査(HE染色)

- 1：弱拡大で卵巣甲状腺組織と連続して小型円型の腫瘍細胞の増殖を認めた。
- 2：強拡大にて腫瘍細胞は索状～管腔構造をとりながら増殖し，一部で充実性増殖を認めた。核分裂像はほとんどなし。

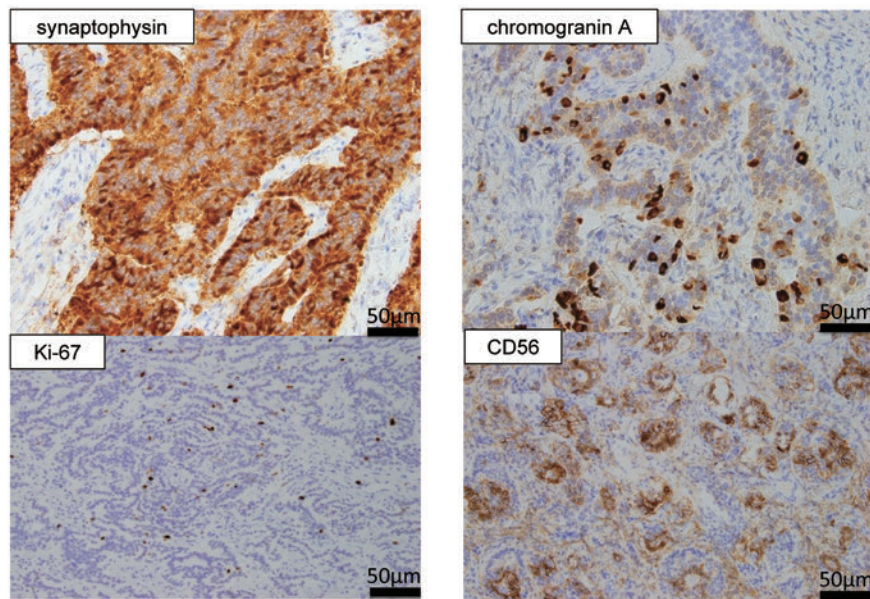


図5 病理組織検査（免疫染色）  
synaptophysin, chromogranin A, CD56が陽性であり、Ki-67の陽性率は2－3％である。

は高くなく、核分裂像も0-1/HPFと細胞増殖指数が低い  
ため、神経内分泌腫瘍のWHO分類でNET G1に相当する  
カルチノイドと診断された。また腫瘍辺縁の嚢胞壁に  
皮膚及び皮膚付属器を認めた。以上より右卵巣成熟奇形  
腫、左卵巣は成熟奇形腫を伴う甲状腺腫性カルチノイド  
と診断された（図4）（図5）。

臨床経過：術後経過は問題なくクリニカルパスに従い術  
後3日目に退院となった。左卵巣腫瘍の病理診断が甲状  
腺腫性カルチノイドであったこと、甲状腺腫性カルチノ  
イドは境界悪性腫瘍であるため子宮全摘出、右付属器摘  
出、大網切除の追加手術が望ましいことを説明したが、  
手術に同意されなかった。消化器内科に紹介して胃及  
び大腸内視鏡検査を行ったが明らかな病変は認めず、  
FDG-PET/CTでも明らかな異常集積を認めなかった。  
術後1年10か月経過しているが、明らかな再発所見を認  
めていない。術前に認めていた便秘症状は軽快し、他院  
にて処方されていた緩下薬は中止となっている。

## 考 案

本症例は術前の画像検査で左卵巣腫瘍、右卵巣皮様囊  
腫とも明らかな悪性を疑わせる所見を認めなかったため  
腹腔鏡下手術を選択したが、術後病理検査にて左卵巣腫  
瘍は境界悪性腫瘍に分類される甲状腺腫性カルチノイド  
と診断された。

カルチノイドは1907年にOberdorferによって提唱さ  
れた名称であり、消化管に発生し形態的にcarcinomaに  
類似するが異型性は低く緩徐に発育する良性の経過を  
たどる腫瘍とされた<sup>6)</sup>。しかし遠隔転移をきたす症例  
も少なくないことから消化器領域では神経内分泌腫瘍

（neuroendocrine neoplasma）として総称され、分化  
度や細胞増殖能（核分裂指数、Ki-67指数）による悪性  
度によってneuroendocrine tumor（NET）G1, G2, G3,  
neuroendocrine carcinomaに分類されている<sup>7)</sup>。卵巣原  
発カルチノイドは1939年にStewart et al.により初めて  
報告され<sup>8)</sup>、本邦では1976年に細田らが初めて報告して  
いるが<sup>9)</sup>、カルチノイド全体の0.5～1.7%<sup>3)</sup>、卵巣腫瘍全  
体の0.1%以下と非常にまれな腫瘍である<sup>4) 5)</sup>。

卵巣原発カルチノイドは卵巣癌取り扱い規約では胚  
細胞腫瘍の単胚葉性奇形腫及び皮様嚢腫に伴う体細胞  
型腫瘍に分類されている<sup>1)</sup>。若年者から高齢者まで見ら  
れ、主に片側性に発症するといわれている。形態的に  
は充実性腫瘍を呈するが、組織学的にはNET G1に類似  
している。甲状腺腫性カルチノイドは卵巣に特有のカ  
ルチノイドであり、甲状腺腺腫及び成熟奇形腫部分、  
カルチノイド部分、両者が混在する部分を含み、組織  
学的には境界悪性に分類されている<sup>1)</sup>。甲状腺腫性カル  
チノイドは腫瘍細胞が甲状腺濾胞細胞と混在あるいは  
移行しながら増殖することが知られているが、カルチ  
ノイドを構成する腫瘍細胞については免疫組織化学的  
染色による神経内分泌マーカーであるsynaptophysin,  
chromogranin A, CD56の発現で診断される<sup>10)</sup>。本症例  
も免疫染色でsynaptophysin, chromogranin A, CD56  
が陽性であり、thyroglobulinが一部陽性であった。

卵巣甲状腺腫のMRI画像は様々な信号を呈する分葉状  
多房性嚢胞性の形態が特徴である。様々なサイズの造影  
効果が強く拡散低下を伴わない充実部の存在が卵巣甲  
状腺腫を示唆する所見といわれている。成熟奇形腫が混  
在することが多いため、脂肪成分の存在も診断の手掛かり

となる。また単純CTにおいてはヨードを反映して高吸収を呈する<sup>11)</sup>。本症例は左卵巢に充実部分と嚢胞部分が混在する腫瘍を認め、嚢胞部分は脂肪抑制画像で信号低下を認めた。充実部分はT1強調画像で軽度高信号を呈しており、造影効果は認めしたが、拡散能の低下は認めなかった。腹部CTでは嚢胞成分は左卵巢に脂肪と石灰化を伴い、成熟奇形腫が示唆されたが、充実部分のCT値は筋層とほぼ同等で、典型的な卵巢甲状腺腫と診断できる所見ではなかった。卵巢甲状腺腫性カルチノイドはMRIのT2強調画像にて充実部分で低信号を呈するとの報告があるものの、画像診断で特徴的な所見がないとする報告もある。さらに特異的な腫瘍マーカーが存在しないため術前診断は困難とされており<sup>11) 12) 13)</sup>、本症例でも術前にカルチノイドを鑑別診断することは困難であった。

卵巢カルチノイドの一部は平滑筋収縮作用を有するセロトニンを分泌し、顔面紅潮、高血圧、下痢などの症状を呈するカルチノイド症候群を合併するとされているが、甲状腺腫性カルチノイドでカルチノイド症候群を呈することはまれである<sup>14)</sup>。消化管運動を強度に抑制する作用があるpeptide YYを産生する場合には重症の便秘症を伴うことがあり、新カルチノイド症候群と呼ばれている<sup>15) 16)</sup>。また甲状腺腫性カルチノイドが甲状腺機能亢進症の症状を呈するのは8%程度であり、通常は特に臨床症状を呈さないことが多い<sup>17)</sup>。

卵巢カルチノイドは組織学的に境界悪性に分類されるため、卵巢境界悪性腫瘍に対するガイドラインに準じた治療、すなわち子宮摘出、両側付属器摘出、大網切除を行うことが検討されている<sup>18)</sup>。卵巢カルチノイドの予後は比較的良好であり、発育は緩徐で転移例も少ないとされている<sup>2)</sup>。卵巢カルチノイドの多くは限局性であるため片側もしくは両側付属器摘出による完全切除で良好な成績が報告されている<sup>4) 5) 16) 19)</sup>。Davis et al.によれば治療切除軍の5年生存率は91.3%、卵巢カルチノイドの90%以上を占めるI期症例に限れば5年生存率は100%とされるが、発見時に浸潤・転移を認める症例では5年生存率は33%と低いとされている<sup>5)</sup>。

本症例はこれまでの報告と同様に術前画像診断、腫瘍マーカー等で悪性を示唆する有意な所見を認めず、良性疾患が想定されたため、低侵襲性を優先して腹腔鏡下手術を行った。摘出腫瘍は回収バッグ内に収納し、バッグ内で細切操作を行ったため腫瘍内容の腹腔内への漏出は回避することができた。術後病理検査でthyroglobulin, synaptophysin, chromogranin A, CD56, Ki-67等の免疫染色を行い、甲状腺腫を伴うNET G1相当の卵巢甲状腺腫性カルチノイドとの診断に至った。甲状腺腫性カルチノイドが原因で甲状腺機能亢進症の症状を呈するのは約8%との報告があるが<sup>17)</sup>、本症例は甲状腺機能亢進症

の既往はあるものの、当科受診時には寛解しており、カルチノイドとの関連性はないと考えている。一方で、術前に緩下薬の常用を要する便秘症を伴っていた。術後に便秘症状は軽快し緩下薬の内服も中止可能となったことより、当科では病理学的にpeptide YYの産生の有無についての検討はできていないが、新カルチノイド症候群を合併していた事が推測された。本症例では、術後全身検索を行い、明らかな病変がないことを確認し、さらに患者本人の希望も尊重して追加手術を行わない方針とした。しかし、局所切除で十分良好な予後は期待できるものの、今後も慎重な経過観察が必要である。

## 結 語

腹腔鏡下手術を施行し、病理診断にて卵巢成熟奇形腫に甲状腺腫性カルチノイドを認めた一症例を経験した。明らかな悪性所見を認めなくても充実部分を伴う卵巢腫瘍に対して腹腔鏡下手術を施行する場合には、常に飛散なく摘出・回収する配慮が必要であることを再認識した。

本論文に関わる著者の利益相反：なし

謝辞：本症例の病理診断に関して徳島県立中央病院病理診断科の工藤英治先生及び徳島大学病院病理部の遠藤秀子先生にご指導いただきましたことを深謝いたします。

## 文 献

- 1) 日本産科婦人科学会・日本病理学会(編). 卵巢腫瘍・卵管癌・腹膜癌取り扱い規約 病理編 第1版. 東京：金原出版, 2016; 50-52.
- 2) 曾我淳. カルチノイド及び類縁の内分泌癌—本邦症例と外国症例の比較—. 日本臨床外科学会誌 2003; 64: 2953-2966.
- 3) Tavassoli FA, Devilee P (eds). World health organization classification of tumors. Pathology and genetics of tumours of the breast and female genetic organs. Lyon: IARC Press, 2003; 172-173.
- 4) Modlin M, Kevin L, Mark K. A5-decade analysis of 13715 carcinoid tumors. *Cancer* 2003; 97: 934-959.
- 5) Davis KP, Hartmann LK, Keeney GL, Shapiro H. Primary ovarian carcinoid tumors. *Gynecologic Oncology* 1996; 61: 259-265.
- 6) Caplin ME, Buscombe JR, Hilson AJ, Jones AL, Watkinson AF, Burroughs AK. Carcinoid tumor. *Lancet* 1998; 352: 799-805.
- 7) 日本神経内分泌腫瘍研究会(JMETS) 膵・消化管神経内分泌腫瘍診療ガイドライン第2版作成委員会(編). 膵・消化管神経内分泌腫瘍診療ガイドライン2019年(第2版). 東京：金原出版, 2019.

- 8) Stewart MJ, Willis RA, de Saran GSW. Argentaffine carcinoma (carcinoid tumor) arising in ovarian teratoma. A report of two cases. *The Journal of Pathology and Bacteriology* 1939; 49: 207-212.
- 9) 細田峻, 鈴木春見, 鬼頭花枝, 佐藤秩子, 田代貫一郎, 千原勤. 卵巣原発カルチノイド—本邦第1例の検討と文献的考察—. *癌の臨床* 1976; 22: 559-571.
- 10) 瀬尾優太郎, 本原剛志, 片淵秀隆. これでわかる婦人科希少腫瘍 10. カルチノイド腫瘍. *産科と婦人科* 2021; 67: 203-207.
- 11) 今岡いずみ, 坪山尚寛, 田中優美子. 画像診断別冊KEY BOOKシリーズ 婦人科MRIアトラス. 東京: 秀潤社, 2019.
- 12) 飯高満三芳, 山本さやか, 佐近普子, 高木偉博, 西澤千津恵, 森篤. 卵巣甲状腺腫性カルチノイドの一例. *日本産科婦人科内視鏡学会雑誌* 2016; 32: 265-270.
- 13) 甲斐一華, 仙波恵樹, 加藤俊平, 花岡美生, 兒玉尚志. 腹腔鏡で手術後に診断した, 卵巣甲状腺腫性カルチノイドを合併した成熟奇形腫の1例. *現代産婦人科* 2018; 67: 307-311.
- 14) Robboy SJ, Norris HJ, Scully RE. Insular carcinoid primary in the ovary: A clinicopathologic analysis of 48 cases. *Cancer* 1977; 36: 404-418.
- 15) Motoyama T, Katayama Y, Watanabe H, Okazaki E, Shibuya H. Functioning ovarian carcinoids induce severe constipation. *Cancer* 1992; 70: 513-518.
- 16) 本山悌一. 卵巣カルチノイド. *病理と臨床*. 1993; 11: 1167-1170.
- 17) Robboy SJ, Scully RE. Strumal carcinoid of the ovary: An analysis of 50 cases of distinctive tumor composed of thyroid tissue and carcinoid. *Cancer* 1980; 46: 2019-2034.
- 18) 日本産婦人科腫瘍学会 (編). CQ31 片側付属器摘出術後に境界悪性腫瘍と判明した場合追加手術は勧められるか? 卵巣がん・卵管癌・腹膜癌治療ガイドライン2020年版. 東京: 金原出版, 2020; 163-165.
- 19) Nasioudis D, Frey MK, Chapman-Davis E, Caputo TA, Holcomb K. Primary malignant ovarian carcinoid; management and outcomes. *Gynecologic Oncology* 2020; 157: 101-105.

---

**【連絡先】**

三谷 龍史

吉野川医療センター産婦人科

〒776-8511 徳島県吉野川市鴨島町知恵島字西知恵島120

電話: 0883-26-2222 FAX: 0883-26-2300

E-mail: ryumitani@ja-ymc.jp