

原發性後腹腔黏液性囊腺腫瘤：一病例報告

王愛軍 朱正心 林錫泉 陳瑜珍* 劉建良**

馬偕紀念醫院 胃腸肝膽科 *病理科 **一般外科

摘 要

一位 48 歲女性，於例行性腹部超音波檢查時，偶然地發現在左下腹有一個腫瘤。她近幾年有便秘的習慣，除此以外並無其它症狀。理學檢查時，在左下腹可摸到一富彈性且固定之腫瘤。腹部超音波及電腦斷層檢查時都發現一直徑約 8 公分之囊狀腫瘤位於左側腎臟下方。經手術取出後，證實為原發性後腹腔黏液性囊腺瘤合併原位癌（primary retroperitoneal mucinous cystadenoma with carcinoma in situ）。在此我們也回顧一些文獻，並提出相關於本病例之病因、診斷、治療及癒後的看法。

關鍵詞：原發性後腹腔黏液性囊腺瘤（Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma）

境界線囊腺瘤（Borderline cystadenoma）

前言

原發性後腹腔黏液性囊腺瘤（primary retro-peritoneal mucinous cystadenoma）為一罕見之腫瘤，且此種病例大都發生於女性。臨床上常因症狀不明顯，故在手術前常難以正確診斷。在此提出一原發性後腹腔黏液性囊腺瘤合併原位癌之病例報告，並討論有關此病之病因、診斷、治療及癒後。

病例報告

一位 48 歲女性 B 型肝炎帶原者，於例行性腹部超音波檢查時，偶然地發現在左下腹有一個腫瘤，於是轉到本院做進一步檢查。她近幾年因為便秘，經常服用緩瀉劑，除此以外並無其它症狀。她於 29 年前曾因盲腸炎開刀、於 16 年前行剖腹生產。目前已停經 4 年半，且每天規律地補充女性荷爾蒙。

理學檢查顯示腹部平坦柔軟，腸音正常，在左下腹可摸到一富彈性且固定之腫瘤，但沒有明顯壓痛。腹部超音波檢查時則發現一直徑約 8 公分、中心具低回音之囊狀腫瘤位於左側腎臟下方。腫瘤壁之內緣，有些部分呈不規則形狀，並且發現一乳突狀物向內突出（圖一）。腹部電腦斷層檢查發現一囊狀腫瘤位於左側腹部中央，腫瘤壁有鈣化現象，且同樣可見到乳突狀物向內突出。其它構造如肝、脾、胰、子宮及子宮附件

（adnexa uteri）、主動脈旁淋巴結等均正常（圖二）。有關血液、生化等實驗室檢查均無異常。血液腫瘤指數包括 CEA、CA 125、CA 19-9 等均在正常範圍。

在剖腹探查時，發現一 15x10 公分大小之腫瘤（圖三），它位於左側腎臟下方、降結腸及輸尿管外側，與周圍其它器官均不相連，且輕易地就能完整地剝離及切除。病理檢查顯示一表面光滑之囊狀腫瘤，內含暗紅色液體。在囊壁內側可見一 1.5 公分大小、白色、柔軟之突起（圖四）。在顯微鏡下觀察時，發現此腫瘤為一黏液性囊狀腫瘤，其外包覆一層纖維狀被膜。囊壁內側表皮則可見到良性柱狀細胞及介於良性、惡性間的非典型表皮細胞排列（圖四、五）。於乳頭狀突起內，其細胞排列較凌亂，且可見到正在進行有絲分裂的惡性細胞，但並未穿過基底膜，屬於原位癌之表現（圖六）。病人術後恢復良好，4 個月後之腹部超音波檢查，並無復發跡象。

討論

後腹腔在解剖上可供擴展的潛藏空間甚大，故腫瘤可長得很大而仍無症狀。原發性後腹腔囊狀腫瘤極為罕見。在診斷上，大多數病例沒有症狀，卻常因檢查時被醫師偶然發現；其它較常見的症狀有腹脹、腹痛；少數有噁心、嘔吐、背痛。腹部 X 光檢查時，可見到軟組織腫塊推擠著腸內氣體，使其侷限一隅。超音波可以由腫瘤位置、囊壁形狀等做初步篩檢。如在本病例中，於左腎下方發現一囊狀腫瘤，且在囊壁內側發現一乳突狀突起，這類突起中常會有惡性變化的可能 1-2，必須特別留意。也有報告利用經皮穿刺以抽取囊液，並測定其中 CEA, CA 125 及 CA 19-9 濃度，或直接抽吸乳突狀物，做細胞學分析來幫助診斷 2。電腦斷層攝影及血管攝影也有助益。核磁共振造影更可分別腫瘤的組成、血管的分佈等。鑑別診斷包括腸系膜囊腫、囊狀畸胎瘤、淋巴囊腫、囊狀間皮細胞瘤等，然而正確診斷常需靠組織病理檢查。在治療上，剖腹探查並摘除仍是最常用的方法。近來也有利用腹腔鏡手術成功的例子 3，但若懷疑是惡性腫瘤，則不適合此種手術。

有關原發性後腹腔黏液性囊腺瘤的來源問題，目前有四種假說：

一、源自畸胎瘤（teratoma）；

二、源自異位的卵巢組織；

三、源自胚胎時泌尿生殖系統之殘跡；

四、在胚胎生長期，胚腔的上皮（coelomic epithelium）或腹膜的間皮細胞

（peritoneal mesothelium）在嵌入後腹腔之後，細胞進行黏液性變生（mucinous metaplasia），並長大形成囊腫 4。在組織免疫的研究中，有人發現到腫瘤的囊壁除柱狀細胞外，還有小而扁的立方體細胞，它們不但形狀類似間皮細胞，而且具有與間皮細胞相同的細胞標誌（cell marker），即 calretinin 5。由前人電子顯微鏡的研究，也觀察到囊壁由似間皮細胞之外表，轉變為良性的黏液性柱狀上皮細胞的變化 6。這些證據都支持此假說，因此它也成為目前最廣為被接受的理論。此腫瘤在臨床病理上有三種表現，它們可以單獨也可共同出現。最常見的是良性的囊腺瘤

（cystadenoma）3, 7-13，可見排列整齊的柱狀細胞；還有境界線囊腺瘤

（borderline cystadenoma）

1-2,14，其部分表皮可見柱狀細胞增生；最後是惡性的囊腺癌 (cystadenocarcinoma) 6,15-16，細胞排列凌亂，核呈多形性，也會侵犯表皮下的結締組織。以上三種病理變化，在我們所報告的病例中，除了未見到腫瘤侵犯外，其它均有出現，實在非常少見。至於癒後，良性的囊腺瘤追蹤 8 個月至 2 年的結果，都未見復發 3,8-10,12-13。而境界線囊腺瘤，曾報告一例在手術治療 4 年後轉移 14。惡性的囊腺癌，則有人報告在手術治療 6 個月後發生轉移 15，但也有人追蹤 22 至 36 個月後，仍未見復發 6,16。故一般來說，其癒後不會太差，但仍需注意定期追蹤以防復發。由於病例稀少，故特別提出以供大家在診斷、治療時參考。

參考文獻

- 1.Papadogiannakis N, Gad A, Ehliar B. Primary retroperitoneal mucinous tumor of low malignant potential: histogenetic aspects and review of the literature. *APMIS* 1997;105:483-6.
- 2.Motoyama T, Chida T, Fujiwara T, Watanabe H. Mucinous cystic tumor of the retroperitoneum. *Acta Cytol* 1994;38:261-6.
- 3.Chen JS, Lee WJ, Chang YJ, Wu MZ, Chiu KM. Laparoscopic resection of a primary retroperitoneal mucinous cystadenoma: report of a case. *Surg Today* 1998;28:343-5.
- 4.Williams PP, Gall SA, Prem KA. Ectopic mucinous cystadenoma. *Obstet Gynecol* 1971;38:381-7.
- 5.Subramony C, Habibpour S, Hashimoto L A. Retroperitoneal mucinous cystadenoma. *Arch Pathol Lab Med* 2001;125:691-4.
- 6.Fujii S, Konishi I, Okamura H, Mori T. Mucinous cystadenocarcinoma of the retroperitoneum: A light and electron microscopic study. *Gyn Oncol* 1986;24:103-12.
- 7.Kehagias DT, Karvounis EE, Fotopoulos A, Gouliamos AD. Retroperitoneal mucinous cystadenoma. *Eur J Obstet Gynecol Repro Biol* 1999;82:213-5.
- 8.Yunoki Y, Oshima Y, Murakami I, et al. Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1998;77: 357-8.
- 9.Bortolozzi G, Grasso A, Zasso B. Mucinous cystadenoma of the retroperitoneum. *Eur J Gynecol Oncol* 1995;16:65-8.
- 10.Rothacker D, Knolle J, Stiller D, Borchard F. Primary retroperitoneal mucinous cystadenomas with gastric epithelial differentiation. *Path Res Pract* 1993;189:1195-204.
- 11.Holder CA, Sisstrom CL, Sutton CL, Mckinney CD. Retroperitoneal cyst in an adult woman. *Invest Radiol* 1993;28:868-70.
- 12.Kutta A, Engelmann U, Schmidt U, Senge T. Primary retroperitoneal tumors. *Urol Int* 1992;48: 353-7.
- 13.Pennell TC, Gusdon JP. Retroperitoneal mucinous cystadenoma. *Am J Obstet*

Gynecol 1989;160:1229-31.

14.Banerjee R, Gough J. Cystic mucinous tumors of the mesentery and retroperitoneum: report of three cases. Histopathology 1998;12:527-32.

15.Roth LM, Ehrlich CE. Mucinous cystadenocarcinoma of the retroperitoneum. Obstet Gynecol 1977;49:486-8.

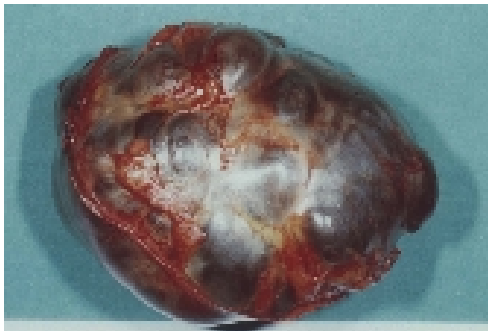
16.Nelson H, Benjamin B, Alberty R. Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma. Cancer 1988;61:2117-21.



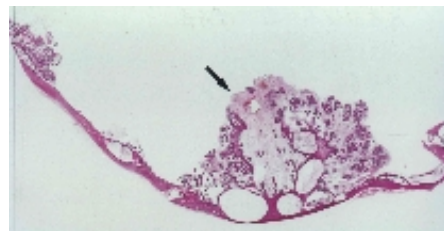
圖一：腹部超音波可見一 8 公分大小，中央具低回音之囊狀腫瘤。在囊壁內緣可見部分不規則表面，且有一 1.5 公分大小之乳突狀物 (↓)。



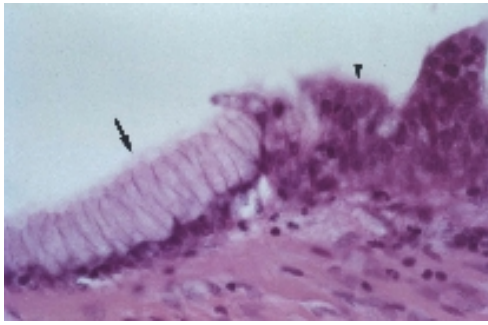
圖二：腹部電腦斷層檢查發現一囊狀腫瘤位於左側腹部中央 (↗)，腫瘤壁有鈣化現象，且同樣可見到乳突狀物向內突出 (▼)。



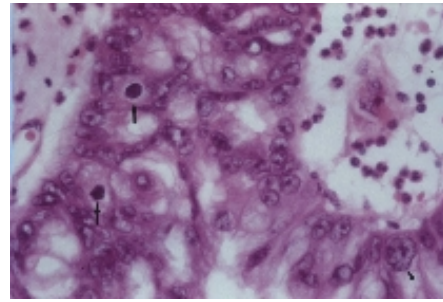
圖三：由剖腹探查取出一 15x10 公分大小之腫瘤，表面光滑，與周圍其它器官均不相連。



圖四：腫瘤壁內側呈不規則狀，並有乳突狀突起構造 (↘)。
(H&E,X1)



圖五：腫瘤壁內側有排列整齊含有黏液的柱狀細胞（↘），也有增生成層狀排列的非典型細胞（▼）。（H&E, X 400）



圖六：於乳頭狀突起內，其細胞排列較凌亂，且可見到正在進行有絲分裂的細胞（↑），細胞核呈大小不一，有明顯核仁及厚的核膜（▲）。但並未穿過基底膜，屬於原位癌之表現。（H&E, X 400）

Primary Retroperitoneal Mucinous Cystic tumor : A Case Report

**Ay-Jiun Wang, Cheng-Hsin Chu, Shee-Chan Lin,
Yu-Jan Chan*, and Chien-Liang Liu****

**IDivision of Gastroenterology, Department of Internal Medicine,
Department of *Pathology and **Surgery,
Mackay Memorial Hospital, Taipei, Taiwan**

A case of primary retroperitoneal mucinous cystadenoma with carcinoma in situ histologically confirmed in a 48-year-old woman is reported. A painless mass was found in the left middle abdomen incidentally. Ultrasound and CT of the abdomen detected the tumor which was about 8 cm in diameter. Explorative laparotomy was performed and a large cystic tumor was easily removed. The microscopic examination revealed a mucinous cystadenoma with carcinoma in situ. We also discuss aspects of histogenesis, diagnosis, treatment and prognosis of this type of tumor and review the available literature. The metastatic potential of the tumor warrant careful pathologic analysis and follow-up of patient presenting with such lesions. (J Intern Med Taiwan 2001;12:293-296)

