

Ovaryum Matür Kistik Teratomdan Gelişen Strumal Karsinoid Tümör

Strumal Carcinoid Tumor Originating from Mature Cystic Teratoma of Ovary

Sefa KURT,^a
Ömer Erbil DOĞAN,^a
Emine Çağnur ULUKUŞ,^b
Hikmet Tunç TİMUR,^a
Uğur SAYGILI^a

^aKadın Hastalıkları ve Doğum AD,
^bTıbbi Patoloji AD,
Dokuz Eylül Üniversitesi Tıp Fakültesi
İzmir

Geliş Tarihi/Received: 25.01.2017
Kabul Tarihi/Accepted: 26.07.2017

Yazışma Adresi/Correspondence:
Sefa KURT
Dokuz Eylül Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Kadın Hastalıkları ve Doğum AD, İzmir,
TÜRKİYE/TURKEY
sefakurt@gmail.com

ÖZET Primer ovaryen strumal karsinoid tümörler, overin matür kistik teratomundan malign diferansiyasyon sonucu gelişen, son derece nadir görülen tümörlerdir. Bu çalışmada, postmenopozal dönemde, karın ağrısı ve kronik konstipasyon yakınmalarıyla kliniğimize başvurup adneksiyal kitle saptanan ve bu açıdan değerlendirmeye alınan 58 yaşındaki olgu sunulmuştur. Klinik, görüntüleme ve laboratuvar yöntemleriyle değerlendirme sonucu matür kistik teratom ön tanısı ile opere edilen, intraoperatif olarak frozen kesitle incelemesi benign olarak değerlendirilen ve postoperatif kalıcı kesit incelemesinde strumal karsinoid tümör tanısı alan olgu, az görülmesinden dolayı ilginç bulunarak, tanı ve tedavi özellikleri açısından literatür eşliğinde tartışılmıştır.

Anahtar Kelimeler: Karsinoid tümörü; over; struma ovarii; teratom

ABSTRACT Primary ovarian strumal carcinoid tumors develop from the mature cystic teratoma of the ovary through malignant differentiation and are extremely rare tumors. In this report, the case of a 58-years-old patient, who was in the postmenopausal period and diagnosed with adnexal mass after visiting our clinic due to abdominal pain and chronic constipation, is presented. The patient was operated with the prediagnosis of mature cystic teratoma after being examined with clinical, radiological and laboratory methods. The intraoperative frozen section pathological examination had been reported as benign, whereas the postoperative examination of the permanent sections was reported as strumal carcinoid tumor. The case was found interesting due to its infrequency, and was discussed with the literature about the characteristics, diagnosis and treatment.

Keywords: Carcinoid tumor; ovary; struma ovarii; teratoma

Primer ovaryen karsinoid tümörler çok nadir görülmekte ve primer over malignitelerinin %0,1'ini oluşturmaktadırlar. Dünya Sağlık Örgütü (DSÖ), primer over karsinoid tümörlerini histopatolojik özelliklerine göre beş alt başlık altında toplamaktadır.¹ Bunlar; insüler tip (orta barsaktan gelişen), trabeküler tip (ön veya arka barsaktan gelişen), strumal tip (endodermal kaynaklı tiroid ve C hücre farklılaşması sonucu gelişen), müsinoz tip (goblet veya adenokarsinoid farklılaşma sonucu gelişen) ve mikst tiplerdir (insüler ve trabeküler).¹ En sık görülen ovaryen karsinoid tümörler insüler tip, ikinci sıklıkta ise strumal karsinoid tip tümörlerdir.²

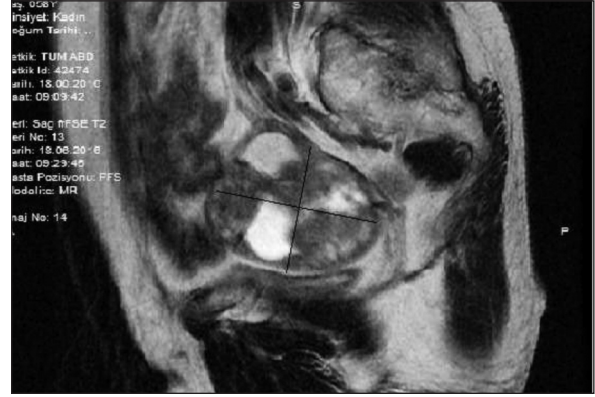
Ovaryen strumal karsinoid tümör, karsinoid ve tiroid dokusundan oluşur ve ovaryen teratomun nadir görülen bir formudur.

Bu çalışmada, postmenopozal adneksiyal kitle nedeni ile opere edilen ve strumal karsinoid tümör tanısı alan 58 yaşındaki bir olgu literatür eşliğinde tartışılmıştır.

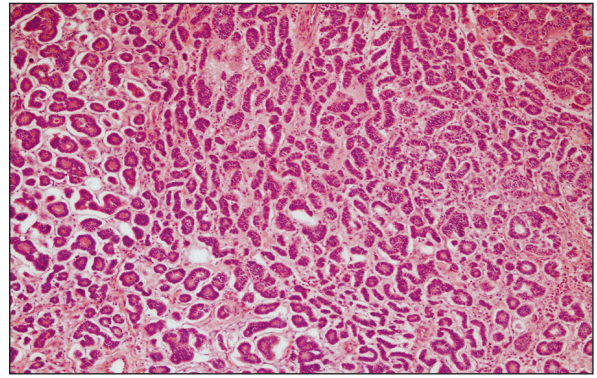
OLGU SUNUMU

Elli sekiz yaşındaki, postmenopozal, multipar (G₄, P₄) olgu, karında şişkinlik, ağrı ve kronik kabızlık yakınmalarıyla başvurdu. Sekiz yıldır menopozda olan olgunun tıbbi öz geçmişi özellik arz etmiyordu. Yapılan jinekolojik muayenede; sol adneksiyal kitle bulgusu dışında patoloji saptanmadı. Ultrasonografik (USG) görüntüleme; uterus normal, antevert; endometriyum lineer 3 mm, sağ over atrofik 15x21 mm, sol over orijinli 70x80 mm boyutlarında, içinde vasküler kodlanma bulgusu gösteren ve solid alanlar içeren kitle lezyonu izlendi. Manyetik rezonans görüntüleme (MRG)'de, sol overde 70x70 mm boyutlarındaki teratomla uyumlu kitle, yoğun kontrast tutan solid alanlar içermesi nedeni ile malignite açısından kuşku olarak değerlendirildi (Resim 1). Tümör belirleyicilerinden CA: 19-9 (79,3 U/mL) yüksekliği dışında diğer tümör belirleyicileri, biyokimyasal testler ve hemogram değerleri normal sınırlarda idi. Üst ve alt gastrointestinal sistem endoskopilerinde patolojik bulguya rastlanmadı. Servikovajinal "smear" sonucu benign özellikte idi.

Laparotomi uygulanan olgunun batın gözleminde; sol overde 70x80 mm boyutlarında, lobüle kontürlü, kapsülü intakt lezyon izlendi. Uterus, sağ over, pelvik ve üst abdominal organlar normal görünümde idi. Batın yıkama sıvısı örneği alındıktan sonra sol adneksiyal kitle ekstre edilerek intraoperatif incelemeye gönderildi. Frozen kesit inceleme sonucunun "Epitelyal malignite düşünülmedi, ayırıcı tanıda strumal karsinoid gibi bir monodermal teratom ya da seks kord strumal tümörler düşünüldü; bu yönden kesin tanı parafine bırakıldı." olarak bildirilmesi üzerine, total abdominal histerektomi (TAH) ve sağ salpingo-ooferektomi (SO) yapılarak operasyona son verildi. İntraoperatif ve postoperatif dönemde komplikasyon gelişmeyen olgu, 3. gün cerrahi iyilik hâliyle taburcu edildi. Operasyon materyalinin patolojik muayenesi: Sol adneksiyal kitleye ait operasyon materyali makros-



RESİM 1: Manyetik rezonans görüntüleme kontrast madde tutan, lobüle kontürlü ovarial kitlenin sagittal planda görüntüsü.



RESİM 2: Strumal karsinoid tümör (strumal karsinoid alanlar (H&E, x100).

kobik olarak 198 g ağırlığında, 8x7,5x6 cm boyutlarında olup, üzerinde 4 cm uzunluğunda 1 cm çaplı tuba uterina ile uyumlu doku izlenmekte idi. Kapsül rüptürü ve yüzey tutulumu izlenmedi. Kitlenin kesit yüzü genelde solid, gri sarı renkli olup, yer yer kistik ve kalsifik alanlar içermekte idi. Materyalin kalıcı kesitlerle incelenmesi sonucu; batın yıkama sıvısı, histerektomi materyali, sağ tuba uterina ve sağ over özellik göstermezken, sol overde strumal karsinoid tümör saptandı. Tümör çoğunlukla karsinoid tümör ve komşuluğunda tiroid dokusu alanlarıyla karakterize "strumal karsinoid" özelliğinde olup, yer yer matür teratom alanları da içermekte idi (Resim 2). Olgu, kurumumuz jinekolojik onkoloji konseyinde nihai patoloji sonucu ile birlikte retrospektif olarak değerlendirildi. Karsinoid sendrom, tirotoksikoz yönünde bulgu saptanmadı. Olguya Galyum 68 pozitron emisyon tomografi-bilgisayarlı tomografi (Ga-68 PET-BT)

çekildi. Lokal ya da sistemik tümör yayılımını işaret eden, patolojik tutulum gösteren doku izlenmedi. Mevcut bulgular eşliğinde "International Federation of Gynecology and Obstetrics (FIGO)" Evre IA olarak değerlendirilen olgu 3 aylık klinik izleme alındı.

TARTIŞMA

Matür kistik teratomlar (MKT), yumurtalık germ hücrelerinden kaynaklanan ve üreme çağındaki kadınlarda %20-25 oranında, yaygın olarak izlenen benign neoplazilerdir.³ Erişkinlerde tüm over tümörlerinin %20'sini, çocuklarda %50'sini oluşturmaktadır ve bu tümörlerde bilateralite oranı %10-20'dir.³ MKT, üç germ hücre tabakasından (ektoderm: cilt veya sinir; endoderm: müsinöz, silli epitelyum; mezoderm: kas, kemik, kıkırdak, yağ) gelişen matür dokular içermektedir. Spesifik matür bir doku baskınlığıyla karakterize ovaryum monodermal teratomu ise struma ovarii (tiroid dokusu), karsinoid tümör (nöroektodermal doku) içermektedir.^{3,4}

MKT'ler benign tümörlerdir. Ancak, her üç germ yaprağından da gelişebilen malign dönüşüm %0,17-2 oranında izlenebilmektedir. Malign dönüşüm daha çok postmenopozal dönemde, yaşamın 5. ve 6. dekadlarında artmaktadır ve %80'i skuamöz hücreli karsinom şeklinde olmaktadır.⁴⁻⁶ Olgumuzda postmenopozal 6. dekada (58 yaşında) olup, malign dönüşümün daha belirgin olduğu yaş döneminde idi.

MKT zemininden (%0,1) veya struma ovarii'den (%5) gelişen strumal karsinoid tümörler ise çok daha nadir izlenmektedir. Strumal karsinoid tümörler, diğer malign ve metastatik over tümörlerine göre unilateral, erken evre ve daha iyi prognoludurlar.^{1,7} Literatürde insüler tip karsinoid tümörlerin üçte birinde karsinoid sendrom (flashing, diyare, hipertansiyon, kardiyak üfürüm, pretibial ödem) bulgularının gözlendiği bildirilmektedir.^{1,5,7} Strumal tip karsinoid over tümörlerinde karsinoid sendrom bulguları nadirdir, genelde metastaz izlenmez ve erken evre tümörlerdir. Ancak bazı hastalarda, barsak hareketlerinin güçlü bir inhibitörü olan, peptit YY (PYY)

üretimine bağlı olarak şiddetli konstipasyon görüldüğü bildirilmiştir.¹ Hastalar, çoğunlukla abdominal ağrı ve pelvik kitle yakınmasıyla ya da farklı amaçla istenen görüntülemelerde insidental olarak saptanmaktadır.⁶⁻⁸ Olgumuzda da ana yakınma abdominal ağrı ve konstipasyon olup, karsinoid sendromun klinik ya da laboratuvar bulgularından herhangi biri gözlenmemiştir. Lezyonun bir overe sınırlı ve kapsül intakt görünümde olduğu saptanmıştır. Ayrıca tiroid fonksiyon testleri, retrospektif yapılan tiroid muayenesi ve görüntülemesi normal olarak değerlendirilmiştir. Cerrahi tedavinin hemen sonrası konstipasyon yakınması dramatik bir şekilde ortadan kalkmıştır. Operasyondan iki ay sonra yapılan, retrospektif Ga-68 PET-BT incelemesinde metastaz bulgusuna rastlanmamıştır.

MKT düşünülen bir hastanın görüntüleme yöntemleri (USG, BT, MRG) ile değerlendirilmesinde; MKT'nin karakteristik bulguları (yağ, kemik, kıl, diş vs. ilişkin bulgular) yanı sıra kist duvarında nodüler formasyon (Rokitanski nodülü), yumuşak doku komponentinde artış, kist iç duvarı ve yumuşak doku komponenti arasındaki açının artması, düşük dirençli kan akımı, malign transformasyon açısından uyarıcı olmalıdır.^{3,8,9}

Malign dönüşümü belirlemede tümör belirteçlerinden de yararlanılabilmektedir. Yükselmiş CA125 ve CA19-9 malign dönüşümde uyarıcı olmalıdır. CA 19-9'un malign dönüşümlerin %37,4'ünde yükseldiği bildirilmektedir.¹⁰ Olgumuzda da CA125 değeri normal düzeyde iken, CA19-9 (79,3 U/mL) yüksek olarak saptanmıştır. Ayrıca skuamöz hücreli karsinom diferansiyasyonu varlığında, serum skuamöz hücreli kanser antijeninin, malign dönüşümü belirlemede yararlı olabileceği bildirilmektedir.⁹

FIGO Evre IA olarak değerlendirilen olguda, batın yıkama sıvısı ve TAH, bilateral SO tedavisi yeterli bulundu. İntraoperatif frozen kesit incelemesinde malign tanısı alan ya da daha ileri evre olduğu düşünülen tüm hastalarda tam cerrahi evreleme yapılmalı, klinikopatolojik prognostik faktörler eşliğinde hastalar adjuvan tedavi ve izlem açısından değerlendirilmelidir.

Sonuç olarak, MKT'lerde az da olsa malign transformasyon olasılığı göz önünde bulundurulmalıdır. Hastalar, iyi bir anamnez eşliğinde, mevcut klinik ve laboratuvar bulguları ile titizlikle değerlendirilmelidir. Görüntüleme yöntemlerinde malign transformasyon yönünde şüpheli bulguların ve/veya yükselmiş tümör belirleyicilerinin varlığında, intraoperatif konsültasyon yapılmalı ve cerrahi tedavi objektif bulgulara göre şekillenmelidir.

Çıkar Çatışması

Yazarlar herhangi bir çıkar çatışması veya finansal destek bildirmemiştir.

Yazar Katkıları

Fikir/Kavram/Tasarım/Yazım: Sefa Kurt; **Denetleme/Danışmanlık:** Ömer Erbil Doğan, Uğur Saygılı; **Veri Toplama/Kaynak Tarama:** Hikmet Tunç Timur; **Analiz/Yorum:** Emine Çağnur Ulukuş.

KAYNAKLAR

- Ghanbarzadeh N, Semnani MN, Azarkar Z, Haghighi F, Semnani AN. Primary strumal carcinoid tumor of ovary: a case report. Iranian Journal of Pathology 2014;9(4):285-90.
- Kurabayashi T, Minamikawa T, Nishijama S, Tsuneki I, Tamura M, Yanase T, et al. Primary strumal carcinoid tumor of the ovary with multiple bone and breast metastases. J Obstet Gynaecol Res 2010;36(3):567-71.
- Saba L, Guerriero S, Sulcis R, Virgilio B, Melis G, Mallarini G. Mature and immature ovarian teratomas: CT, US and MR imaging characteristics. Eur J Radiol 2009;72(3):454-63.
- Park CH, Jung MY, Ji YI. Risk factors for malignant transformation of mature cystic teratoma. Obstet Gynecol Sci 2015;58(6):475-80.
- Hinshaw HD, Smith AL, Desouki MM, Olawaiye AB. Malignant transformation of a mature cystic ovarian teratoma into thyroid carcinoma, mucinous adenocarcinoma, and strumal carcinoid: a case report and literature review. Case Rep Obstet Gynecol 2012;2012:269489.
- Gürbüz T, Kurt S, Canda MT, Arslan Ç, Keser B, Taşyurt A. [Malign transformation in mature cystic teratoma of ovary of a breast cancer patient: squamous cell carcinoma]. Tepecik Eğitim Hast Derg 2013;23(2):97-100.
- Güraslan H, Doğan K, Kaya C, Şentürk MB, İdil NS. Primary strumal carcinoid tumor of the ovary as an incidental finding in cesarean section. Zeynep Kamil Tıp Bülteni 2016;47(3):88-9.
- Park SB, Cho KS, Kim JK. CT findings of mature cystic teratoma with malignant transformation: comparison with mature cystic teratoma. Clin Imaging 2011;35(4):294-300.
- Emoto M, Obama H, Horiuchi S, Miyakawa T, Kawarabayashi T. Transvaginal color Doppler ultrasonic characterization of benign and malignant ovarian cystic teratomas and comparison with serum squamous cell carcinoma antigen. Cancer 2000;88(10):2298-304.
- Frimer M, Seagle BL, Chudnoff S, Goldberg GL, Shahabi S. Role of elevated cancer antigen 19-9 in women with mature cystic teratoma. Reprod Sci 2014;21(10):1307-11.