

Ovarian Strumal Karsinoid: Olgu Sunumu

Strumal Carcinoid of the Ovary: A Case Report

Betül Bolat Küçükzeybek, Ayşe Vatansever, Aylin Orgen Çallı, Türkan Rezanko

İzmir Katip Çelebi Üniversitesi, Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Tıbbi Patoloji Kliniği, İzmir, Türkiye



Öz

Strumal karsinoid çoğu trabeküler tipte karsinoid tümör ile tiroid elementlerinin karışımından oluşan over teratomlarının nadir görülen bir formudur. Ovarian kitlenin büyümesine bağlı semptomlarla ya da insidental olarak ortaya çıkar. Kasık ve bel ağrısı olan elli yaşında kadın hasta hastanemiz kadın hastalıkları ve doğum polikliniğine başvurdu. Sistem muayenesi normal olan hastaya yapılan alt abdominal bilgisayarlı tomografide sol adneksiyal alanda 16x12 cm boyutta solid-geniş kistik kitle lezyonu saptanarak öncelikle over tümörü lehine olduğu belirtildi. Adneksiyal kitle ve myoma uteri nedeniyle total abdominal histerektomi+bilateral salpingooferektomi yapılan hastada overde strumal karsinoid ve çevresinde yağ doku alanları ile iç içe deri eklerinin varlığı saptandı. İmmünohistokimyasal incelemede tiroid dokusu alanlarında tiroid transkripsiyon faktör-1 ve tiroglobulin pozitifliği, karsinoid alanında ise sinaptofizin ve kromogranin pozitifliği izlendi. Over teratomlarının nadir görülen bir varyantı olan strumal karsinoid tanıları hastanın klinik, morfolojik ve immünohistokimyasal özellikleri literatürler eşliğinde tartışılarak sunuldu.

Anahtar Kelimeler

Struma ovarii, karsinoid tümör, strumal karsinoid

Keywords

Struma ovarii, carcinoid tumor, strumal carcinoid

Geliş Tarihi/Received : 13.09.2014

Kabul Tarihi/Accepted : 13.09.2014

doi:10.4274/meandros.1768

Yazışma Adresi/Address for Correspondence:

Dr. Betül Bolat Küçükzeybek,
İzmir Katip Çelebi Üniversitesi, Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Tıbbi Patoloji Kliniği, İzmir, Türkiye
E-posta : bbkzeybek@yahoo.com
22. Ulusal Patoloji Kongresi, 7-11 Kasım 2012, Antalya, Türkiye

Abstract

Strumal carcinoid is a rarely seen form of ovarian teratoma composed of a mixture of mostly trabecular carcinoid tumor and thyroid elements. It is detected based on the symptoms resulting from the growth of an ovarian mass or incidentally. A 50-year-old female patient with inguinal and low back pain was admitted to the outpatient clinic of the gynecology and obstetrics department in our hospital. The patient's systemic examination did not reveal any abnormalities but her lower abdominal computed tomography which in turn showed a solid and large cystic mass with dimensions of 16x12 cm in the left adnexal region. First, these findings were considered in favor of an ovarian tumor. The patient underwent total abdominal hysterectomy+ bilateral salpingo-oophorectomy operation for the adnexal mass and uterine myomas. We detected stromal carcinoid in the ovary and skin appendages nested with adipose tissue areas in the surrounding area. In the immunohistochemical examination, thyroid transcription factor-1 and thyroglobulin positivity was observed in the areas of the thyroid tissue and, synaptophysin and chromogranin positivity was observed in the carcinoid area. We present clinical, morphological and immunohistochemical characteristics of a patient diagnosed with stromal carcinoid, a rarely seen variant of the ovarian teratomas, along with the literature.

Giriş

Strumal karsinoid çoğu trabeküler tipte karsinoid tümör ile tiroid elementlerinin karışımından oluşan over teratomlarının nadir görülen bir formudur (1-4). Ovarian kitlenin büyümesine bağlı semptomlarla ya da insidental olarak ortaya çıkan bu tümörde karsinoid komponent olguların yarısında pür trabekülerdir. Diğer olgularda ise trabeküler-insüler karışımı ya da nadiren müsinöz karsinoid şeklindedir. Tiroid komponenti ise makro-mikrofoliküler düzenlenimde ve tipik olarak kolloid içerir (5,6). Over teratomlarının oldukça nadir görülen varyantı olan strumal karsinoid tanı olgu, nadir görülmesi ve tanı aşamasındaki ayırıcı tanı güçlükleri nedeniyle literatür verileri eşliğinde sunulmuştur.

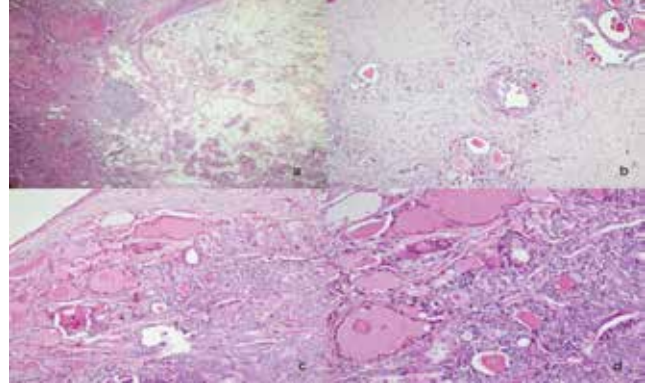
Olgu Sunumu

Kasık ve bel ağrısı olan 50 yaşında kadın hasta hastanemiz kadın hastalıkları ve doğum polikliniğine başvurdu. Üç gebelik ve 3 canlı doğum öyküsü olan, özgeçmiş ve soygeçmişinde özellik olmayan hastanın tümör belirteçleri (karsinoembriyonik antijen, CA125, CA19-9, CA15-3, alfa-fetoprotein ve insan koryonik gonadotropin) normal olarak saptandı. Yapılan ultrasonografide myoma uteri ve adneksiyal kitle tespit edildi. Sistem muayenesi normal olan hastaya yapılan alt abdominal bilgisayarlı tomografide (BT) sol adneksiyal alanda 16x12 cm boyutta solid-geniş kistik kitle lezyonu saptanarak öncelikle over tümörü lehine olduğu belirtildi. Adneksiyal kitle ve myoma uteri nedeniyle total abdominal histerektomi+bilateral salpingooferektomi (TAH+BSO) yapılan hastanın sol over materyaline intraoperatif frozen çalışıldı. Gönderilen sol over materyali 17x15x10 cm ölçülerinde dış yüzü düzgün, kesitlerinde duvar kalınlığı 1-2 mm olan kistik, içerisinde sarı renkli seröz sıvı bulunan, iç yüzeyinde 1,5x1 cm'lik bir alanda nodüler solid alan bulunduran materyal idi. Mikroskopik incelemede nodüler alana uyan odakta makro ve mikrofoliküler düzenlenimde tiroid dokusu ile iç içe trabeküler ve kord benzeri büyüme paterni gösteren strumal karsinoid ve çevresinde yağ doku alanları ile iç içe deri eklerinin varlığı saptandı (Resim 1). Tümörü oluşturan hücreler eosinofilik sitoplazmalı, uniform yuvarlak-oval nükleuslu idi. Mitoz ve nekroz izlenmedi. Hücreler çoğunlukla trabeküler düzenlenimde ve şerit benzeri yapılar oluşturmaktadı

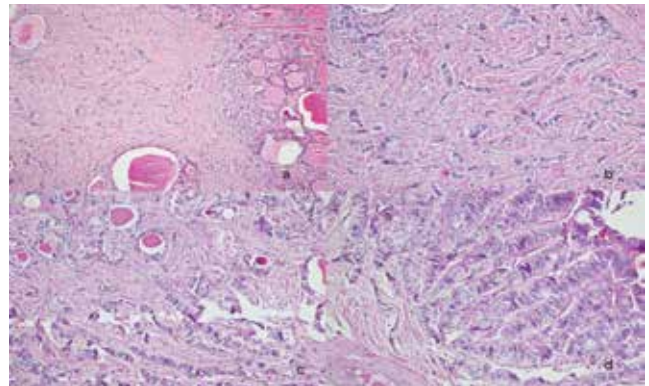
(Resim 2). İmmünohistokimyasal incelemede tiroid dokusu alanlarında tiroid transkripsiyon faktör-1 (TTF-1) (Resim 3a) ve tiroglobulin pozitifliği, karsinoid alanında ise sinaptofizin (Resim 3b) ve kromogranin (Resim 3c) pozitif, kalsitonin ve sitokeratin 19 (Resim 3d) negatif izlendi. Ki-67 proliferasyon indeksi %1 bulundu. Kapsül invazyonu saptanmadı. Karsinoid sendrom bulguları olmayan hastada diğer overde 3 cm çaplı matür kistik teratom saptandı. Uterusta ise en büyüğü 2 cm çaplı üç adet leiomyom saptandı. TAH+BSO dışında herhangi bir tedavi uygulanmayan hastanın 24 aylık takibinde hastaliksız yaşamı devam etmektedir.

Tartışma

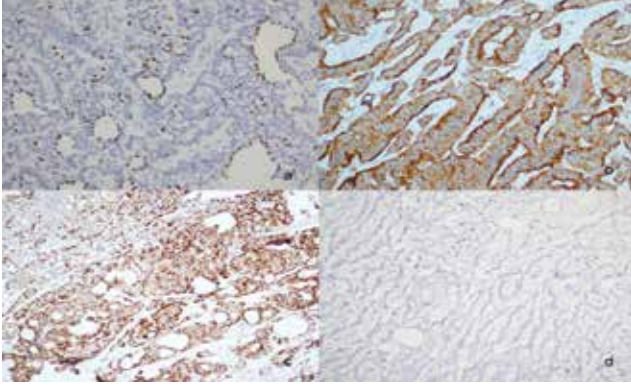
Primer karsinoid tümörler tüm over teratomlarının %5'inden, monodermal teratomlarının %1'inden azını oluşturmaktadır. Strumal karsinoid ise insüler



Resim 1. a, b, c, d) Makro ve mikrofoliküler düzenlenimde tiroid dokusu ile iç içe trabeküler ve kord benzeri büyüme paterni gösteren strumal karsinoid ve çevresinde yağ doku alanları ile iç içe deri eklerinin varlığı (hematoksilen&eoizin)



Resim 2. a, b, c, d) Trabeküler düzenlenimde ve şerit benzeri yapılar oluşturan hücreler (hematoksilen&eoizin)



Resim 3. a) İmmünohistokimyasal incelemede tiroid dokusu alanlarında tiroid transkripsiyon faktör-1 pozitifliği (x20), b) karsinoid alanlarında sinaptofizin (x40) ve c) Kromogranin (x10) pozitifliği, d) Sitokeratin 19 (x10) negatifliği

ve trabeküler tipten sonra en sık görülen over teratomlarının nadir görülen bir formudur (1,3). Strumal karsinoid ilk defa 1970 yılında Robboy ve Scully (3) tarafından tanımlanmış ve 1980 yılında Robboy ve Scully (3) tarafından yapılan 50 olgudan oluşan çalışma ile klinikopatolojik özellikleri önemli ölçüde ortaya konmuştur. Bunun dışında günümüze kadar bildirilen 60'ın üzerinde olgu mevcuttur (7). Klinik olarak ovarian kitlenin büyümesine bağlı semptomlarla ya da matür kistik teratoma eşlik edebilmesi nedeniyle insidental olarak ortaya çıkan bu tümörde nadir olarak karsinoid sendroma bağlı semptomlar da görülebilmektedir. Sulaiman ve ark. (8) ile Matsuda ve ark.'nın (9) yayınladıkları olgularda şiddetli konstipasyon varlığı bildirilmiştir. Bizim olgumuzda karsinoid sendrom bulguları yoktu ve olguda kitle büyümesine bağlı kasık ve bel ağrısı mevcuttu. Pür formu tipik olarak solid kitle şeklinde olan strumal karsinoid olgularında, matür kistik teratoma eşlik ettiği durumlarda kist kavitesine protrüde nodül şeklinde veya insidental mikroskopik bulgu olarak ortaya çıkmaktadır (10). Litertürdeki olgular incelendiğinde radyolojik olarak ultrasonografide veya BT'de burada sunulan olguya benzer şekilde solid-kistik kitle şeklinde izlenmektedir (7,8,11,12). Makroskopik inceleme yapılırken kist duvarının kalınlaştığı yerler ve kist kavitesine protrüde solid nodüller dikkatlice örneklenmelidir. Strumal karsinoid, tiroid dokusu ve karsinoid tümörü bir arada bulunduran nadir bir over tümörüdür. Strumal komponent, normal tiroid dokusuna veya tiroidin benign lezyonlarına benzeyecek şekilde folliküllerden, karsinoid komponent ise trabekül veya şerit benzeri dizilim gösteren hücre gruplarından

oluşur. İki komponent yan yana, karsinoid tümör tiroid folliküllerinin arasına uzanım gösterecek şekilde iç içe bulunabilir veya karsinoid tümör hücreleri follikül hücrelerinin yerini alarak kolloidi çevrelemiş bir görünüm oluşturabilir (6). Ancak karsinoid hücreleri immünohistokimyasal ve sitolojik özelliklerini korurlar. Karsinoid komponent olguların yarısında pür trabekülerdir. Diğer olgularda ise trabeküler-insüler karışımı şeklinde ya da nadiren müsinöz karsinoid şeklindedir. Tiroid komponenti makro-mikrofoliküler düzenlenimdedir ve tipik olarak kolloid içerir. Bizim olgumuzda karsinoid tümör, tiroid folliküllerinin arasına uzanım gösterecek şekilde iç içe idi ve yer yer tümör hücreleri follikül hücrelerinin yerini alarak kolloidi çevrelemiş bir görünüm oluşturmaktaydı. Ayrıca overin diğer alanlarında bu tümöre sıklıkla eşlik ettiği bildirilen (5), yağ doku ve deri eklerini içeren matür kistik teratom alanları izlendi. İmmünohistokimyasal incelemede strumal foliküler epitelde nükleer TTF-1 pozitifliği ile sitoplazmik ve kolloidde tiroglobulin pozitifliği izlendi. Karsinoid komponentte ise sinaptofizin ve kromogranin diffüz membranöz pozitif idi. Ayırıcı tanıda ilk akla gelmesi gereken başta medüller karsinom (5) olmak üzere tiroid maligniteleri, overin granüloza ve sertoli-leydig hücreli tümörleridir (7). Karsinoide benzer şekilde trabeküler büyüme paterni gösteren tiroid medüller karsinomu, kalsitonin negatifliği ve amiloid yokluğu ile ekarte edilmektedir (5). Bununla birlikte strumal komponentin parafoliküler diferansiyasyonu olarak açıklanan ve kalsitonin pozitifliği gösteren az sayıda olgu bildirilmiştir (7). Olguda papiller ve folliküler karsinom ekartasyonu için insan kemik iliği endotelial hücreleri-1 ve galectin-3 uygulandı ve tümörde negatif olarak saptandı (7). Karsinoid nükleuslarının kaba kromatin yapısı ve sitoplazmadaki argentaftin granülleri sayesinde hematoksilen ve eozin boyalı kesitlerle seks kord-stromal tümör ayırımı yapılabilirdi. Robboy ve Scully'nin (3) 1980 yılında yaptığı elli olguluk çalışmada olguların sadece birinde hastalığa bağlı ölüm saptanmış ve strumal karsinoiddeki karsinoid komponentin struma ovarinin malign transformasyonu olarak düşünülmesine rağmen hemen daima benign davranış sergilediğini bildirmişlerdir. Kurabayashi ve ark.'nın (13) 2010 yılında yayınladıkları primer strumal karsinoid olgusunda tümörde belirgin hücresel atipi, yüksek mitotik oran ve fokal nekroz odaklarının varlığını bildirmişlerdir ve hastada tanıdan 3,5 yıl sonra

multipl kemik ve meme metastazları saptanmıştır. Bizim olgumuzda ise tümörde mitoz, nekroz ve kapsül invazyonu saptanmamış olup, Ki-67 proliferasyon indeksi %1 idi. Hastanın 24 aydır hastalısız takibi devam etmektedir. Pluripotent kök hücrenin çok yönlü diferansiyasyonu sonucu oluşan strumal karsinoid, mortalitesi bulunmayan ve ooferektomi ile kür sağlanan, overde sınırlı olduğunda hemen daima benign özellikte bir tümördür (6,7). En sık karıştırılan struma ovariiiden gelişen tiroid karsinomları ile ayrımı; tedavi, prognoz ve beklenen yaşam süreleri arasındaki farklılık nedeniyle doğru yapılmalıdır.

Etik

Hasta Onayı: Çalışmamıza dahil edilen tüm hastalardan bilgilendirilmiş onam formu alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Editörler kurulu dışında olan kişiler tarafından değerlendirilmiştir.

Yazarlık Katkıları

Konsept: Betül Bolat Küçükzeybek, Dizayn: Betül Bolat Küçükzeybek, Veri Toplama veya İşleme: Ayşe Vatansever, Analiz veya Yorumlama: Betül Bolat Küçükzeybek, Türkan Rezanko, Literatür Arama: Ayşe Vatansever, Aylın Orgen Çallı, Yazan: Betül Bolat Küçükzeybek.

Çıkar Çatışması: Yazarlar bu makale ile ilgili olarak herhangi bir çıkar çatışması bildirmemiştir.

Finansal Destek: Çalışmamız için hiçbir kurum ya da kişiden finansal destek alınmamıştır.

Kaynaklar

1. Nucci MR, Oliva E. Gynecologyc pathology. Elsevier Churchill: Living Stone, 2009: 523-30.
2. Gorin I, Sastre-Garau X. Strumal carcinoid tumor of the ovary. J Clin Pathol 2008; 26: 2780-1.
3. Robboy SJ, Scully RE. Stromal carcinoid of the ovary: an analysis of 50 cases of a distinctive tumor composed of thyroid tissue and carcinoid. Cancer 1980; 46: 2019-34.
4. Hayashi T, Haba R, Kushida Y, Kadota K, Katsuki N, Miyai Y, et al. Cytopathologic characteristics of the primary strumal carcinoid tumor of the ovary: a case report with emphasis on differential diagnostic considerations. Diagn Cytopathol 2013; 41: 812-6.
5. Rosai J. Rosai and Ackerman's Surgical Pathology. Tenth Edition, Volume 2, Elsevier, 2011 (Chapter 19),1590-2.
6. Kurman RJ, Ellenson LH, Ronnett BM. Blaustein's Pathology of the Female Genital Tract. Sixth edition, Springer, New York: Dodrecht Heidelberg London, 2011; (Chapter 16), 869-90.
7. Yamada S, Hisaoka M, Tanimoto A, Urabe R, Sasaguri Y. Two cases of strumal carcinoid of the ovary: the enigma of its histogenesis: brief report. Rev Esp Patol 2011; 44: 49-54.
8. Sulaiman S, Chia YN, Namuduri RV. Strumal carcinoid tumour of the ovary presenting with severe constipation. Singapore Med J 2013; 54: 21-3.
9. Matsuda K, Maehama T, Kanazawa K. Strumal carcinoid tumor of the ovary: a case exhibiting severe constipation associated with PYY. Gynecol Oncol 2002; 87: 143-5.
10. Clement PB, Young RH. Atlas of gynecologic surgical pathology, second edition. Elsevier Health Sciences, 2009; 17: 377-8.
11. Aka N, Köse G, Gönenç I, Kumru P, Gümrükcü GY. Overin primer strumal karsinoid tümörü. Türk Jinekolojik Onkoloji Dergisi 2006; 9: 79-81.
12. 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.
13. Kurabayashi T, Minamikawa T, Nishijima 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: 567-71.