

Submitted: 17.10.2016  
Accepted: 21.10.2016

## Mucinous borderline ovarian tumor: a case report with diagnostic insights on ultrasound findings

### Śluzowy guz jajnika o granicznej złośliwości: opis przypadku i spostrzeżenia diagnostyczne

Anna Szymańska-Dubowik<sup>1</sup>, Marcin Śniadecki<sup>2</sup>,  
Agnieszka Bianek-Bodzak<sup>3</sup>, Marcin Liro<sup>2</sup>, Edyta Szurowska<sup>1</sup>

<sup>1</sup> 2<sup>nd</sup> Department of Radiology, Medical University of Gdańsk, Poland

<sup>2</sup> Department of Gynecology, Gynecologic Oncology and Gynecologic Endocrinology, Medical University of Gdańsk, Poland

<sup>3</sup> 1<sup>st</sup> Department of Radiology, Medical University of Gdańsk, Poland

Correspondence: Anna Szymańska-Dubowik, 2nd Department of Radiology, Medical University of Gdańsk, Smoluchowskiego 17, 80-214 Gdańsk, tel.: +48 58 349 36 80, 668 417 868, e-mail: adubowik@gumed.edu.pl

DOI: 10.15557/JoU.2016.0041

#### Key words

ovary,  
borderline tumor,  
papillae,  
ultrasound,  
computed  
tomography

#### Słowa kluczowe

ziarniniakowe  
zapalenie stercza,  
biopsja stercza,  
ultrasonografia  
przezodbytnicza

#### Abstract

Borderline ovarian tumors represent about 10% of all epithelial ovarian cancers, but in contrast to epithelial ovarian cancers, they constitute a group of tumors with a much better prognosis. An assessment of clinical presentation, physical examination, radiological and biochemical findings is necessary to tailor management strategies for patients with ovarian tumors. The article, which is based on a case report, describes different approaches for preoperative diagnosis as well as discusses approaches that might bring some insights on tumor histology. Furthermore, it raises a question about which imaging techniques should be proposed for a reliable diagnosis of borderline ovarian tumors to ensure safe surgery planning.

#### Streszczenie

Guzy o granicznej złośliwości stanowią około 10% nabłonkowych nowotworów jajnika, ale w porównaniu z rakami jajnika charakteryzują się lepszym rokowaniem. Analiza obrazu klinicznego, badania fizykalnego, badań radiologicznych i biochemicznych jest niezbędna, by pacjentkę z guzem jajnika skierować na odpowiednie leczenie. W artykule na podstawie przedstawionego przypadku opisano podejścia diagnostyczne do przedoperacyjnego rozpoznania, a także poddano dyskusji badania pozwalające na wgląd w histologię guza oraz kwestię, jakie badania obrazowe powinno się zaproponować, aby z dużym prawdopodobieństwem potwierdzić obecność guzów o granicznej złośliwości i bezpiecznie zaplanować operację.

## Background

Between 70 and 75% of all ovarian tumors are of epithelial origin, with borderline ovarian tumors (BOTs) accounting for 10% of these neoplasms<sup>(1)</sup>. BOTs are defined as atypical proliferative tumors or tumors of low malignant potential with microinvasion into the stroma. There are seven types of BOTs: serous, mucinous, endometrioid, clear cell, Brenner, undifferentiated and mixed tumors. The incidence of BOTs among cysts without obvious signs of malignancy is low – about 0.6%<sup>(2,3)</sup>.

Although the diagnosis of BOT is based on histopathological examination, the preoperative evaluation of clinical, radiological and laboratory picture of the patient is of great importance. It is associated with a better prognosis than in the case of EOCs<sup>(4-6)</sup>. Accurate radiological findings related to the character of the lesion may play a crucial role in planning surgical treatment. This is also important due to the fact that the disease usually affects young women who wish to maintain their reproductive potential by undergoing a possibly less radical surgery<sup>(2)</sup>.

The aim of this article was to present a case of a patient with ovarian tumor in order to show the underestimated role of imaging techniques in the diagnostic process.

## Case report

A 27-year-old woman with pelvic pain and abdominal discomfort presented to the Department of Gynecology, Gynecologic Oncology and Gynecologic Endocrinology in the Medical University of Gdańsk. She reported no cancer his-

## Wstęp

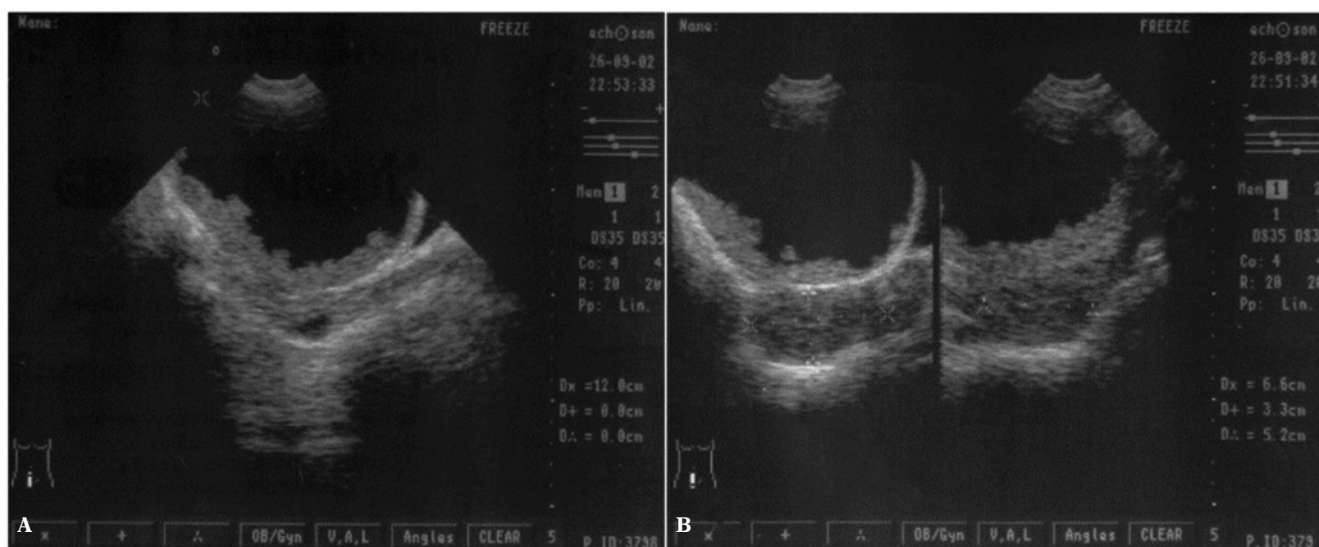
Pomiędzy 70% a 75% wszystkich guzów jajnika to guzy pochodzenia nabłonkowego, przy czym guzy jajnika o granicznej złośliwości (*borderline ovarian tumours*, BOT) stanowią 10% tych nowotworów<sup>(1)</sup>. BOT są definiowane jako nietypowe nowotwory związane z proliferacją lub guzy o niskim potencjale złośliwości z mikroinwazją zrębu. Wyróżnia się siedem typów BOT: surowiczy, śluzowy, endometrioidalny, jasnokomórkowy, guz Brennera, niezróżnicowany i mieszany. Częstość występowania BOT wśród zmian torbielowatych niewykazujących typowych cech złośliwości jest niska – wynosi około 0,6%<sup>(2,3)</sup>.

Mimo że rozpoznanie BOT opiera się na badaniu histopatologicznym, przedoperacyjna ocena kliniczna, radiologiczna i laboratoryjna pacjentki ma wielkie znaczenie. Wiąże się to z lepszym rokowaniem niż w przypadku nabłonkowych raków jajnika<sup>(4-6)</sup>. Dokładne wyniki badań radiologicznych dotyczących charakteru zmiany mogą odgrywać kluczową rolę w planowaniu leczenia chirurgicznego. Jest to ważne również ze względu na fakt, że choroba dotyka głównie młode kobiety, chcące utrzymać potencjał rozrodczy, u których jeśli to możliwe, wykonuje się mniej radykalny zabieg chirurgiczny<sup>(2)</sup>.

Celem niniejszego artykułu było przedstawienie przypadku pacjentki z guzem jajnika i wykazanie istotnej roli techniki obrazowania w przebiegu procesu diagnostycznego.

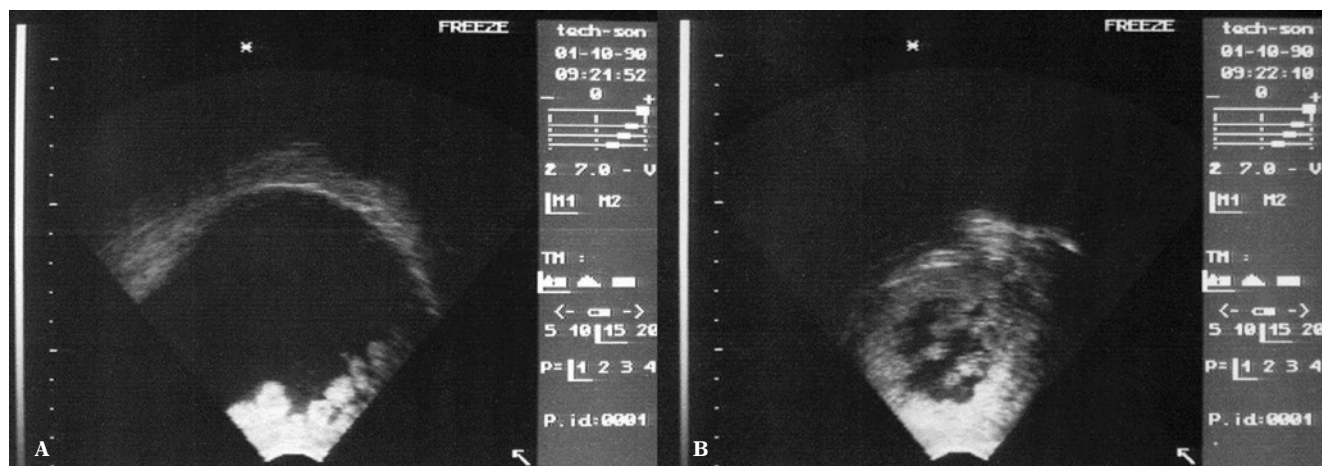
## Opis przypadku

Dwudziestosiedmioletnia kobieta z bólem i uczuciem dyskomfortu w jamie brzusznej została przyjęta do Kliniki Ginekologii, Ginekologii Onkologicznej i Endokrynologii Ginekologicznej



**Fig. 1.** Ultrasound examination of mostly hypoechoic multilocular cystic tumor with well-delineated smooth borders and a diameter of 12 cm, with small solid echogenic papillary projections (multi-locular solid type, however only one loculus is seen)

**Ryc. 1.** Badanie ultrasonograficzne przedstawia hipoechogeniczną wielokomorową patologiczną zmianę torbielowatą, dobrze odgraniczoną, o gładkich zarysach zewnętrznych, o średnicy 12 cm, z małymi litymi brodawkowatymi strukturami (typ wielokomorowy z obecnością frakcji litej). Na zdjęciu widać tylko jedną z komór



**Fig. 2.** Ultrasound examination: **A.** the same hypoechoic cystic tumor; **B.** there is a satellite tumor with a diameter of 3 cm of the same echostructure on the right

**Ryc. 2.** Badanie ultrasonograficzne: **A.** ten sam hipoechogeniczny torbielowaty guz; **B.** po stronie prawej widoczny jest guz satelitarny o tej samej echostrukturze i średnicy 3 cm

tory or other hereditary risk factors. Abdominal examination revealed a palpable tumor mass that lifted the abdominal wall. No changes were observed in the morphology of the external genitalia. The body of the uterus was movable but shifted posteriorly by a mass adherent to the right ovary.

The CA 125 was over 600 U/mL. Transvaginal ultrasonography (TVU) of the lower pelvis showed an encapsulated, well-delineated structure mostly formed by a liquid content, measuring  $12.2 \times 3.3 \times 5.2$  cm, with a solid fraction present in its internal wall in the form of intraluminal exophytic papillary projections (Fig. 1). The cyst was probably connected with the right ovary, pushing the bladder backwards. The remaining pelvic and extrapelvic organs showed no abnormalities (Fig. 2).

Cystoscopy revealed no lesions in the urinary bladder. Computed tomography (CT) confirmed the presence of cystic lesion with a solid fraction in the right ovary (Fig. 3).

Laparotomy was selected as the surgical procedure due to the tumor size and the criteria for low risk malignancy. Right adnexectomy was performed. A cystic, multilocular tumor with a diameter of 11 cm that was adherent the omentum, peritoneum, urinary bladder and vesicouterine pouch was found. Other pelvic organs showed no pathological changes, including the left ovary.

Histologically, the tumor was described as a cystic tumor of the right ovary. The wall of the cyst was up to 1.5 cm thick, the internal surface was covered with wide intraluminal papillae up to 1.5 cm in height. *Mucinous cystadenoma with limited malignancy of right ovary* was diagnosed and staged IA/pT1aN0Mx according to the International Federation of Gynecology and Obstetrics (FIGO) and the American Joint Committee on Cancer/Union for International Cancer Control (AJCC/UICC) staging system.

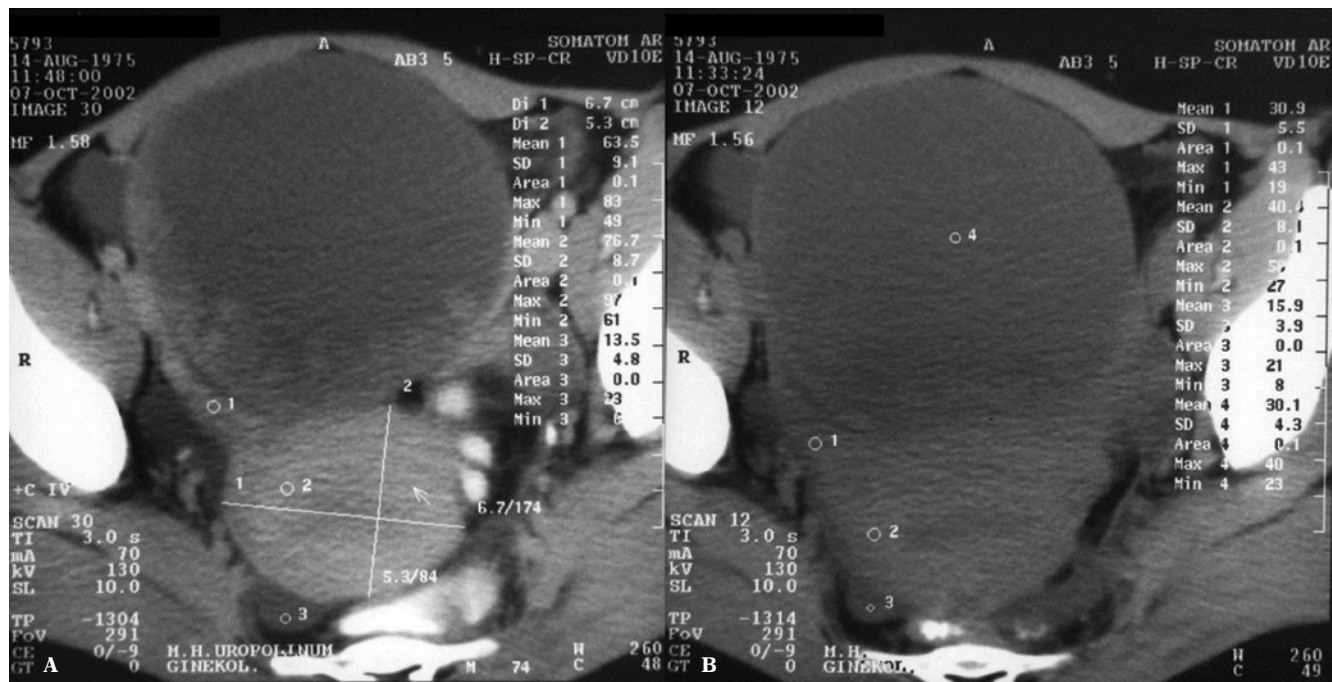
Gdańskiego Uniwersytetu Medycznego. Nie miała chorób onkologicznych w wywiadzie ani innych dziedzicznych czynników ryzyka. W badaniu palpacyjnym jamy brzusznej wykryto guz, który uwypuklał powłoki jamy brzusznej. W zewnętrznych narządach płciowych nie zaobserwowano zmian. Macica była ruchoma, ale przemieszczona ku tyłowi przez patologiczną masę przylegającą do prawego jajnika.

Poziom antygenu nowotworowego CA-125 (*cancer antigen 125*) wynosił ponad 600 j./ml. Przechwytowe badanie ultrasonograficzne (*transvaginal ultrasound*, TVU) miednicy wykazało otorebkowaną, dobrze odgraniczoną strukturę o wymiarach  $12,2 \times 3,3 \times 5,2$  cm, składającą się głównie z płynnej zawartości, ale także z frakcji stałej, obecnej w jej wewnętrznej ścianie pod postacią egzofitycznych struktur brodawkowatych (ryc. 1). Torbiel prawdopodobnie wychodziła z prawego jajnika, przemieszczając pęcherz ku tyłowi. W pozostałych narządach miednicy nie stwierdzono patologicznych zmian (ryc. 2).

Cystoskopia nie wykazała nieprawidłowości w pęcherzu moczowym. Tomografia komputerowa potwierdziła obecność torbielowatego guza w prawym jajniku z zawartością frakcji litej (ryc. 3).

Ze względu na wielkość i niskie ryzyko złośliwości guza zdecydowano o wykonaniu laparotomii. Przeprowadzono prawostronną adnektomię. Znalezione torbielowaty, wielokomorowy guz o średnicy 11 cm, który przylegał do sieci większej, otrzewnej, pęcherza moczowego i zachyłka pęcherzowo-macicznego. W innych narządach miednicy, w tym także w obrębie lewego jajnika, nie stwierdzono zmian patologicznych.

W ocenie histologicznej zmiana została opisana jako torbielowaty guz prawego jajnika. Ściana torbieli miała grubość 1,5 cm, wewnętrzną powierzchnię wypełniały śródścienne struktury brodawkowate wysterczające do światła na 1,5 cm. Rozpoznano gruczolakotorbielak śluzowy (*cystadenoma mucinosum*) o ograniczonej złośliwości w prawym



**Fig. 3. A.** A contrast-enhanced CT scan showing no enhancement of the cystic portion of the tumor and mild wall enhancement with clearly visible large amount of exophytic papillary projections. **B.** Non-contrast-enhanced CT scan showing a cystic tumor with smooth margins and a diameter of 11 cm (30 H.u.) lying anteriorly to and above the bladder, slightly on the right

**Ryc. 3. A.** W badaniu TK z podaniem środka kontrastującego nie widać cech wzmocnienia części torbielowej guza, widoczne jest natomiast słabe wzmocnienie ściany z wyróżniającymi się egzofitycznymi strukturami brodawkowatymi. **B.** Skan natywny (bez środka kontrastującego) przedstawia torbielowaty, dobrze odgraniczony guz o średnicy 11 cm (30 jednostek Hounsfielda), leżący do przodu i powyżej pęcherza moczowego, nieco po stronie prawej

## Discussion

Ovarian cancer is the second most common gynecologic malignancy and the leading cause of death among women with gynecological cancers<sup>(7,8)</sup>. BOTs represent about 10% of EOC, but their prognosis is more favorable. These tumors are detected at younger age and at lower stages.

Difficulties arise at each level of evaluation. Imaging modalities play an important role in the diagnosis, staging and treatment in this subgroup of neoplasms, however, it is difficult to suggest a simple algorithm<sup>(9)</sup>. The choice of diagnostic modality mostly depends on the clinical context<sup>(10)</sup>. Ultrasound seems to be the first choice from the technical and economical point of view.

There are no specific radiological features selectively describing BOTs detectable by ultrasound or other, more advanced modalities. This makes the diagnostic process more difficult. US examination plays an important role in detecting and describing adnexal masses, with the TVU being of greater importance. It is not sufficient to evaluate tumor masses as precisely as recommended by the IOTA (International Ovarian Tumor Analysis)<sup>(11)</sup>. The questions that often arise are as follows: a) which algorithms to follow (images are only supportive) b) which course of action to take – operate or observe? Detailed evaluation provides different approaches: like IOTA's terms or simple "tools" proposed by McDonald *et al.* who based their research on 3 types of

jajniku. Oceniono zaawansowanie guza jako IA/pT1AN0MX według Międzynarodowej Federacji Ginekologii i Położnictwa (FIGO) oraz American Joint Committee on Cancer/Union for International Cancer Control (AJCC/UICC).

## Dyskusja

Rak jajnika to drugi najczęstszy nowotwór złośliwy w ginekologii i najczęstsza przyczyna zgonów wśród kobiet<sup>(7,8)</sup>. BOT stanowią około 10% nabłonkowych raków jajnika, ale w ich przypadku rokowanie jest bardziej korzystne. Guzy te są wykrywane w młodszym wieku i w niższym stopniu zaawansowania.

Trudności pojawiają się na każdym etapie oceny guza. Metody obrazowe odgrywają ważną rolę w diagnostyce i leczeniu oraz ocenie stopnia zaawansowania w tej podgrupie pacjentek, trudno jednak zaproponować prosty algorytm postępowania<sup>(9)</sup>. Wybór metod diagnostycznych zależy przede wszystkim od sytuacji klinicznej<sup>(10)</sup>. Badanie USG z punktu widzenia technicznego i ekonomicznego wydaje się metodą pierwszego wyboru.

Nie istnieją żadne szczególne cechy radiologiczne, które mogą selektywnie opisać BOT za pomocą badania USG lub innych, bardziej zaawansowanych metod diagnostycznych. To sprawia, że proces diagnostyczny staje się trudniejszy. Ultrasonografia odgrywa ważną rolę w wykrywaniu i ocenie przydat-

adnexal masses plus/minus tumor marker elevation (solid vs. cystic vs. complex + CA 125)<sup>(12)</sup>. They found the combination of solid/complex mass with CA 125 elevation to be responsible for the identification of 77.3% of EOC cases. The problem is that there is no typical ultrasound picture of EOS or BOT. Gramellini *et al.* found BOTs in all 5 sonomorphological types of ovarian tumors. However, unilocular solid cysts which most commonly contained papillary projections predominated among all groups<sup>(13)</sup>. We observed a similar type of lesion in the described case. CT is not a routine procedure for the evaluation of adnexal masses. In our case, CT was performed for preoperative confirmation of BOT, however, it probably could have been avoided. MR imaging serves as a solving-problem examination<sup>(14)</sup>. Bent *et al.* described 4 categories of BOT appearances on MRI scans: 1) unilocular cysts; 2) minimally septated cysts with papillary projections; 3) markedly septated lesions with plaque-like excrescences and 4) predominantly solid lesions with exophytic papillary projections<sup>(15)</sup>. This research also described the most important clinical and imaging characteristics that could indicate a suspicion of BOT: in young woman with normal or mildly elevated CA 125 levels, showing predominantly cystic lesion at TVU examination with regular thin wall and the presence of normal ipsilateral ovarian stroma. Although the MRI findings did not differ from those derived from ultrasound studies, it allowed for a more objective and comprehensive evaluation of organs and disorders<sup>(16)</sup>.

## Conclusions

Radiological assessment plays an important role in establishing the final diagnosis and treatment planning in patients with BOT. The role of a gynecologist is to make the final decision regarding further observation or surgery. The role of radiologist is to provide clinicians with assistance during the diagnostic progress, using available imaging modalities with ultrasound as the first choice.

## Conflict of interest

*Authors do not report any financial or personal connections with other persons or organizations, which might negatively affect the contents of this publication and/or claim authorship rights to this publication.*

ków, przy czym metoda endowaginalna dostarcza najwięcej informacji. Nie jest to jednak wystarczające do oceny masy guza tak dokładnie, jak zaleca IOTA (International Ovarian Tumor Analysis – Międzynarodowa Analiza Guzów Jajnika)<sup>(11)</sup>.

Pytania, które się często pojawiają, to: 1) jaki algorytm postępowania przyjąć, skoro diagnostyka obrazowa jest tylko dodatkową metodą oceny; 2) jaki zastosować tok postępowania – operować czy obserwować? Szczegółowa analiza problemu wskazuje na różne podejścia: zgodnie z definicją IOTA lub przy użyciu prostych „narzędzi”, np. zaproponowanych przez McDonalda i wsp., którzy w swoim badaniu podzielili guzy jajnika na trzy typy, równocześnie oceniając poziom markera nowotworowego CA-125<sup>(12)</sup>. Autorzy odkryli, że korelacja obecności litej frakcji guza i podwyższonego poziomu Ca-125 są odpowiedzialne za identyfikację 77,3% przypadków nabłonkowych raków jajnika. Problem diagnostyczny stanowi brak typowego obrazu ultrasonograficznego zarówno dla BOT, jak i nabłonkowych raków jajnika. Gramellini i wsp. odkryli, że BOT występuje we wszystkich typach sonomorfologicznych guzów jajnika, przy czym jednokomorowa torbiel zawierająca element lity – najczęściej pod postacią struktur brodawkowatych – jest najczęstszym jego obrazem<sup>(13)</sup>. W opisanym przez nas przypadku zaobserwowaliśmy zmianę o podobnym charakterze. Tomografia komputerowa nie jest rutynową procedurą w ocenie guzów przydatków. W naszym przypadku wykonana została przed operacją, w celu potwierdzenia rozpoznania BOT, i prawdopodobnie mogła zostać pominięta. Badanie metodą rezonansu magnetycznego służy jako procedura kolejnego wyboru w trudnych przypadkach<sup>(14)</sup>. Bent i wsp. opisali cztery kategorie BOT w obrazowaniu MR: 1) jednokomorowe torbiele; 2) torbiele z nielicznymi przegrodami z obecnością struktur brodawkowatych; 3) torbiele z licznymi przegrodami (wielokomorowe) z naroślami o wyglądzie płytki; 4) zmiany, w których przeważają elementy lite, także o charakterze struktur brodawkowatych<sup>(15)</sup>. To badanie charakteryzuje również najważniejsze cechy kliniczne i obrazowe mogące sugerować BOT: występowanie u młodych kobiet z normalnym lub umiarkowanie podwyższonym poziomem CA-125, u których wykryto obecność cienkościennej zmiany torbielowatej w jajniku w badaniu USG, bez innych zmian w podścielisku. Mimo że ocena jajników w badaniu MR nie różni się istotnie od informacji uzyskanej w badaniu USG, metoda ta pozwala na bardziej obiektywną i kompleksową ocenę narządów oraz ich zaburzeń<sup>(16)</sup>.

## Wnioski

Ocena radiologiczna odgrywa ważną rolę w postawieniu ostatecznej diagnozy i planowaniu terapii u pacjentek z BOT. Rolą ginekologa jest podjęcie decyzji co do dalszej obserwacji lub leczenia operacyjnego, rolą radiologa natomiast – pomoc klinicyście w procesie diagnostycznym przy użyciu dostępnych technik obrazowania, wśród których ultrasonografia stanowi metodę pierwszego wyboru.

## Konflikt interesów

*Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść niniejszej publikacji oraz rościć sobie do niej prawo.*

## References / Piśmiennictwo

- Hart WR: Borderline epithelial tumors of the ovary. *Mod Pathol* 2005; 18 (Suppl. 2): S33–S50.
- Pados G, Tsolakidis D, Bili H, Athanatos D, Zaramboukas T, Tarlatzis B: Laparoscopic management of unexpected borderline ovarian tumors in women of reproductive age. *Eur J Gynaecol Oncol* 2012; 33: 174–177.
- Sharma A, Apostolidou S, Burnell M, Campbell S, Habib M, Gentry-Maharaj A *et al.*: Risk of epithelial ovarian cancer in asymptomatic women with ultrasound-detected ovarian masses: a prospective cohort study within the UK collaborative trial of ovarian cancer screening (UKCTOCS). *Ultrasound Obstet Gynecol* 2012; 40: 338–344.
- Romeo M, Pons F, Barretina P, Radua J: Incomplete staging surgery as a major predictor of relapse of borderline ovarian tumor. *World J Surg Oncol* 2013; 11: 13.
- du Bois A, Ewald-Riegler N, de Gregorio N, Reuss A, Mahner S, Fotopoulou C *et al.*: Borderline tumours of the ovary: a cohort study of the Arbeitsgemeinschaft Gynäkologische Onkologie (AGO) Study Group. *Eur J Cancer* 2013; 49: 1905–1914.
- Shih KK, Zhou Q, Huh J, Morgan JC, Iasonos A, Aghajanian C *et al.*: Risk factors for recurrence of ovarian borderline tumors. *Gynecol Oncol* 2011; 120: 480–484.
- Chan JK, Teoh D, Hu JM, Shin JY, Osann K, Kapp DS: Do clear cell ovarian carcinomas have poorer prognosis compared to other epithelial cell types? A study of 1411 clear cell ovarian cancers. *Gynecol Oncol* 2008; 109: 370–376.
- Woodward ER, Sleightholme HV, Considine AM, Williamson S, McHugo JM, Cruger DG: Annual surveillance by CA125 and transvaginal ultrasound for ovarian cancer in both high-risk and population risk women is ineffective. *BJOG* 2007; 114: 1500–1509.
- Van Calster B, Valentin L, Van Holsbeke C, Testa AC, Bourne T, Van Huffel S *et al.*: Polytomous diagnosis of ovarian tumors as benign, borderline, primary invasive or metastatic: development and validation of standard and kernel-based risk prediction models. *BMC Med Res Methodol* 2010; 10: 96.
- Lucidarme O, Akakpo JP, Granberg S, Sideri M, Levavi H, Schneider A *et al.*: A new computer-aided diagnostic tool for non-invasive characterisation of malignant ovarian masses: results of a multicentre validation study. *Eur Radiol* 2010; 20: 1822–1830.
- Timmerman D, Valentin L, Bourne TH, Collins WP, Verrelst H, Vergote I; International Ovarian Tumor Analysis (IOTA) Group: Terms, definitions and measurements to describe the sonographic features of adnexal tumors: a consensus opinion from the International Ovarian Tumor Analysis (IOTA) Group. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2000; 16: 500–505.
- McDonald JM, Doran S, DeSimone CP, Ueland FR, DePriest PD, Ware RA *et al.*: Predicting risk of malignancy in adnexal masses. *Obstet Gynecol* 2010; 115: 687–694.
- Gramellini D, Fieni S, Sanapo L, Casilla G, Verrotti C, Nardelli GB: Diagnostic accuracy of IOTA ultrasound morphology in the hands of less experienced sonographers. *Aust N Z J Obstet Gynaecol* 2008; 48: 195–201.
- Bazot M, Daraï E, Nassar-Slaba J, Lafont C, Thomassin-Naggara I: Value of magnetic resonance imaging for the diagnosis of ovarian tumors: a review. *J Comput Assist Tomogr* 2008; 32: 712–723.
- Bent CL, Sahdev A, Rockall AG, Singh N, Sohaib SA, Reznick RH: MRI appearances of borderline ovarian tumours. *Clin Radiol* 2009; 64: 430–438.
- Thomassin-Naggara I, Balvay D, Aubert E, Daraï E, Rouzier R, Cuenod CA, Bazot M: Quantitative dynamic contrast-enhanced MR imaging analysis of complex adnexal masses: a preliminary study. *Eur Radiol* 2012; 22: 738–745.