

卵巢 Sertoli 细胞瘤临床病理特征分析

张秀梅¹, 侯兴华², 赵俊军¹

(1. 大连医科大学附属大连市中心医院病理科, 辽宁 大连 116033;

2. 鞍山市中心医院病理科, 辽宁 鞍山 114000)

摘要:目的 探讨 2 例卵巢 Sertoli 细胞瘤的临床病理特征、免疫表型、诊断、鉴别诊断及预后。方法 回顾性分析 2012 年 1 月~2018 年 12 月于我院手术切除的 2 例卵巢 Sertoli 细胞瘤的临床特征、组织学特点及免疫表型, 并复习相关文献。结果 病例 1, 女性, 54 岁, 超声检查发现左附件区 12.5 cm×10.9 cm×10.3 cm 囊实混合性肿物。病例 2, 女性, 22 岁, 超声检查示右卵巢 5.5 cm×4.5 cm×4.0 cm 肿物。镜下肿瘤细胞排列成实性片状、条索状、中空和实性小管状结构, 瘤细胞圆形、卵圆形或梭形, 胞质丰富淡染, 无明显异型性, 核分裂像罕见, 未见 Leydig 细胞。免疫组化示 α -inhibin、WT1 阳性, CR、CK 灶状阳性, CD99、EMA、Syn、CgA 阴性。2 例患者随访时间分别为 22 个月及 19 个月, 一般状态良好, 未见复发和转移。结论 卵巢 Sertoli 细胞瘤罕见, 通常为良性生物学行为, 结合临床病史、组织学形态及免疫组化染色可做出病理诊断。

关键词: 卵巢; Sertoli 细胞瘤; 免疫组化; 鉴别诊断

中图分类号: R737.31

文献标识码: A

DOI: 10.3969/j.issn.1006-1959.2020.02.057

文章编号: 1006-1959(2020)02-0176-03

Analysis of Clinicopathological Characteristics of Ovarian Sertoli Cell Tumor

ZHANG Xiu-mei¹, HOU Xing-hua², ZHAO Jun-jun¹

(1. Department of Pathology, Dalian Central Hospital, Dalian Medical University, Dalian 116033, Liaoning, China;

2. Department of Pathology, Anshan Central Hospital, Anshan 114000, Liaoning, China)

Abstract: Objective To investigate the clinicopathological characteristics, immunophenotype, diagnosis, differential diagnosis and prognosis of 2 cases of ovarian Sertoli cell tumor. Methods The clinical characteristics, histological characteristics, and immunophenotype of 2 cases of ovarian Sertoli cell tumor surgically resected from January 2012 to December 2018 were retrospectively analyzed, and the relevant literatures were reviewed. Results Case 1, female, 54 years old. Ultrasound revealed a 12.5 cm×10.9 cm×10.3 cm cystic solid mass in the left appendage area. Case 2, female, 22 years old. Ultrasonography showed a 5.5 cm×4.5 cm×4.0 cm mass in the right ovary. Under the microscope, tumor cells are arranged into solid sheet-like, strand-like, hollow, and solid small tubular structures. The tumor cells are round, oval, or spindle-shaped. The cytoplasm is rich and lightly stained. No Leydig cells were seen. Immunohistochemistry showed α -inhibin, WT positive, CR, CK focal positive, CD99, EMA, Syn, CgA negative. The two patients were followed up for 22 months and 19 months, respectively, and generally in good condition without recurrence and metastasis. Conclusion Ovarian Sertoli cell tumors are rare and usually benign biological behaviors. Combining clinical history, histological morphology, and immunohistochemical staining can make pathological diagnosis.

Key words: Ovary; Sertoli cell tumor; Immunohistochemistry; Differential diagnosis

卵巢 Sertoli 细胞瘤是一种罕见的性索来源肿瘤, 约占卵巢 Sertoli-Leydig 细胞肿瘤的 4%^[1]。国外报道百余例^[1,2], 国内仅少量报道^[3,4]。以往曾被称为男性母细胞瘤、Pick 管状腺瘤及环状管状性索瘤, 1958 年由 Morris 和 Scully 正式命名为卵巢 Sertoli 细胞瘤。本研究报道我院收治的 2 例卵巢 Sertoli 细胞瘤, 探讨其临床病理学特点、免疫表型、诊断、鉴别诊断及预后, 旨在为临床鉴别诊断该病提供参考。

1 资料与方法

1.1 病例资料 收集大连医科大学附属大连市中心医院及鞍山市中心医院 2012 年 1 月~2018 年 12 月病理诊断为卵巢 Sertoli 细胞瘤的标本 2 例, 均经 2 名及以上有经验的副主任以上病理医师阅片确诊。

1.2 方法 2 例患者术前均行妇科彩超和盆腔 CT 检查, 1 例行开腹全子宫双附件切除术, 1 例行腹腔镜下肿物切除术, 并进行病理检查。对 2 例存档蜡块行 4 μ m 厚连续切片, 常规 HE 染色, 免疫组织化学

染色采用 EnVision 两步法, 具体步骤参照说明书进行。一抗为 α -inhibin、WT1、CR、CK、CD99、EMA、Syn、CgA、Ki-67, 所有抗体均为福州迈新生物技术开发有限公司产品。

1.3 结果判定 肿瘤细胞无阳性表达为(-), 肿瘤细胞阳性数 $\leq 50\%$ 为局灶(+), $>50\%$ 为弥漫(+).

2 结果

2.1 临床特征 病例 1, 女性, 54 岁, 腹痛 1 个月, 逐渐加重伴腹胀 15 天入院。平素月经规律, 无痛经。妇科超声检查发现左附件区大小约 12.5 cm×10.9 cm×10.3 cm 囊实混合性肿物, 形态规则, 边界清楚, 部分呈液性, 部分中等回声, 其内部及周边可见点条状血流信号。肿瘤标志物: 血清 AFP 44.27 ng/ml, CA125 422.40 U/ml。行开腹全子宫双附件切除术, 术中见左卵巢实性质硬灰白色肿物, 直径约 15 cm, 表面光滑, 肠管少许粘连于肿物表面, 临床分期 Ia 期。病例 2, 女性, 22 岁, 体检发现右卵巢肿物。平素月经规律, 偶有痛经。妇科超声检查示右卵巢 5.5 cm×4.5 cm×4.0 cm 肿物, 实性, 边界清楚, 其内部可见血流信号。行右附件切除术, 术中见右卵巢肿物, 直径约 5 cm,

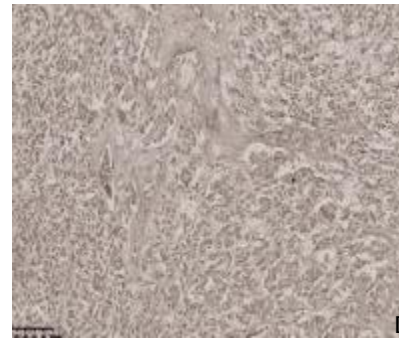
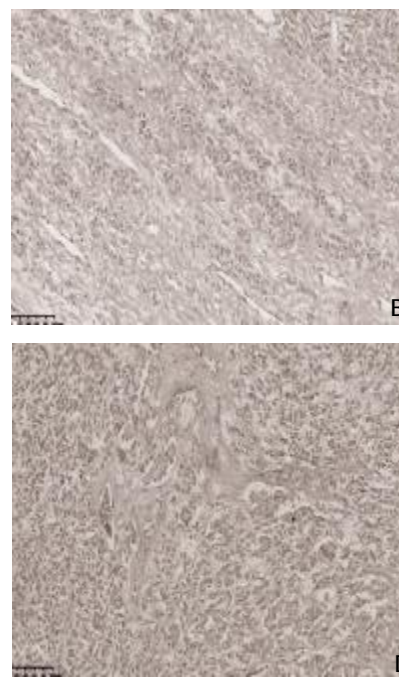
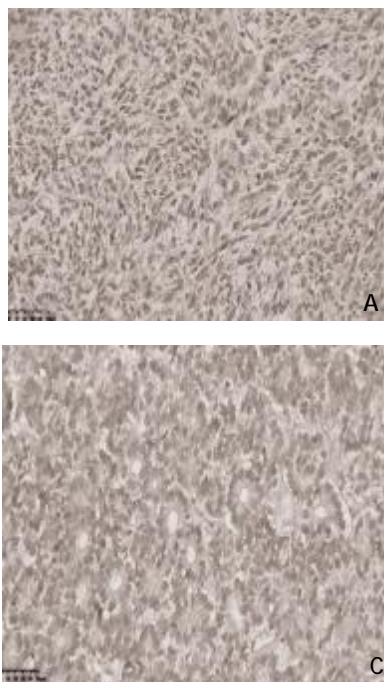
作者简介: 张秀梅(1975.12-), 女, 辽宁大连人, 硕士, 副主任医师, 主要从事肿瘤病理诊断研究

通讯作者: 赵俊军(1966.3-), 女, 辽宁大连人, 硕士, 主任医师, 硕士生导师, 主要从事肿瘤病理诊断研究

实性,表面光滑,与周围无粘连,临床分期 Ia 期。

2.2 巨检 病例 1, 左卵巢肿物 12 cm×10 cm×8 cm, 囊实性,淡黄暗红灰粉色,多彩状,质地中等。病例 2, 右卵巢肿物 5.5 cm×4.5 cm×4.0 cm, 黄白色,实性,质地偏韧。

2.3 镜检 肿瘤细胞排列成实性片状、条索状、中空和实性小管状结构,小管内衬柱状、立方细胞。瘤细胞圆形、卵圆形或梭形,胞质丰富淡染,无明显异型性,核分裂像罕见,未见 Leydig 细胞(图 1A~图 1C)。



注:A.瘤细胞排列成实性片状,细胞卵圆形或梭形;B.瘤细胞排列成条索状;C.瘤细胞排列成中空小管状;D.肿瘤间质可见透明变性的胶原纤维分隔

图 1 患者镜检结果



图 2 肿瘤细胞 α -inhibin 阳性

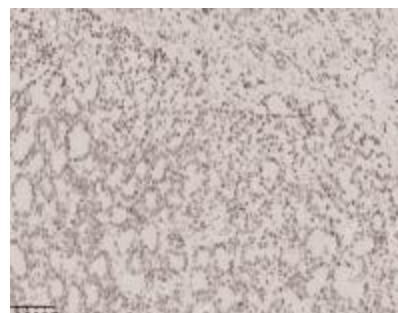


图 3 肿瘤细胞 WT1 阳性

3 讨论

卵巢 Sertoli 细胞瘤罕见,可发生于任何年龄,平均年龄 30 岁,多发生于生育期女性^[5],表现为腹部疼痛或肿胀,月经异常或阴道出血,或者偶然发现。少部分发生于儿童,大多数表现为假性性早熟^[6]。这类肿瘤通常是无功能性的,大约 40%的病例有激素表现,通常为雌激素表现,偶尔为雄激素表现^[7]。罕见情况下并发 Peutz-Jeghers 综合征^[8],多为脂质丰富和嗜酸性变异型 Sertoli 细胞瘤^[9]。卵巢 Sertoli 细胞瘤影像学一般表现为边界清楚的肿块,实性或囊实

肿瘤有丰富的纤维性间质,可见透明变性的胶原纤维分隔(图 1D)。

2.4 免疫表型 肿瘤细胞 α -inhibin、WT1 阳性(图 2、图 3),CR、CK 灶状阳性,CD99、EMA、Syn、CgA 阴性,Ki-67 指数<10%。

2.5 病理诊断 卵巢 Sertoli 细胞瘤,中分化。

2.6 随访 术后随访时间分别为 22 个月及 19 个月,患者一般状态良好,未见复发和转移。

性,增强扫描实性部分可见强化。病变较小时以实性成分为主,病变较大时,则囊性成分显著。较小的病变 CT 检查有时也不易发现,尤其当病变与肠管相邻时,容易造成漏检。而 MRI 检查具有较强的分辨率,敏感性强,可以提高该病的检出率。卵巢 Sertoli 细胞瘤以单侧为主,近来报道 1 例罕见的具有 Mayer-Rokitansky-Küster-Hauser(MRKH)综合征的双侧卵巢 Sertoli 细胞瘤^[10]。

肿瘤平均直径 8 cm,通常实性、分叶状,也可为囊实性,少数仅囊性。实性区域呈黄色或褐色,可有

出血和坏死区域。显微镜下, Sertoli 细胞瘤显示多种形态结构, 大多数肿瘤至少局灶性呈现中空或实性小管结构, 中空小管内衬柱状、立方细胞, 形态温和, 含有淡染或弱嗜酸性胞质, 管腔内也可含有嗜酸性分泌物, 罕见情况可见黏液。实性小管通常伸长, 也可呈圆形或椭圆形, 排列紧密时可呈实性结构。其他结构包括小梁状、弥漫性、腺泡状、假乳头状、网状和罕见的梭形细胞。细胞质从淡染、脂质丰富至嗜酸性。当 Sertoli 细胞瘤内富含脂质时, 可命名为富含脂质的 Sertoli 细胞瘤。多数病例显示肿瘤细胞形态温和, 核通常为圆形或卵圆形, 没有或仅有轻微的异型性, 可见小核仁。肿瘤内出现极少量的 Leydig 细胞不排除 Sertoli 细胞瘤的诊断。肿瘤罕见为恶性, 可发生转移^[1]。可能影响临床结局的因素包括肿瘤大小(>5 cm)、核分裂像>5/10HPF、核异型性和坏死。本组病例肿瘤呈实性片状、梁索状排列, 少部分区域可见中空及实性小管, 管腔内未见嗜酸性分泌物及黏液。细胞呈圆形、卵圆形及梭形, 形态温和, 可见小核仁, 未见 Leydig 细胞。术后随访 22 个月及 19 个月, 一般状态良好, 未见复发和转移。

在免疫表型方面, Sertoli 细胞瘤特异性表达 α -inhibin, 多数表达 Vimentin、广谱 CK、Calretinin 及 CD99, 少数还可表达 SMA、S100, 而不表达 EMA、CgA^[1,11,12]。近来研究发现 WT1 和 SF-1^[13,14]在 Sertoli 细胞瘤中有较高的阳性率, 与 α -inhibin 联合应用有助于 Sertoli 细胞瘤的诊断。

Sertoli 细胞瘤属于纯性索来源肿瘤, 鉴别诊断包括: ①高分化 Sertoli-Leydig 细胞瘤: 由不同比例的 Sertoli 细胞和 Leydig 细胞构成, Leydig 细胞成簇分布, 偶尔可见 Reinke 结晶; ②呈小梁状排列的甲状腺肿或甲状腺肿类癌: 通常具有明显的甲状腺组织, 或与畸胎瘤共存, TTF1 或甲状腺球蛋白染色常为阳性, 不表达 α -inhibin; 甲状腺肿类癌表达神经内分泌标记物, 如 Syn、CgA 及 CD56; ③子宫内膜样癌: 具有明显的子宫内膜样分化或鳞化, 表达 EMA, 不表达 α -inhibin; ④小管状 Krukenberg 瘤: 通常双侧发生, 胞浆内富含黏液, 黏液卡红染色阳性; ⑤来源于 Wolff 管附件的肿瘤: 常见于阔韧带, 也可见于后腹膜及卵巢。肿瘤呈乳头状、梭形和小管状结构, 可含有 Sertoli 细胞。免疫组化可帮助诊断, 肿瘤细胞表达 CK7 及 AR。

Sertoli 细胞瘤一般预后良好, 多数为临床 I 期。2014 版 WHO 女性生殖系统肿瘤分类中将其编码定为 1^[5], 即认为是交界性或恶性潜能未定的肿瘤, 因此术后应进行长期随访。

总之, 本次收治 2 例卵巢 Sertoli 细胞瘤经治疗后均取得良好效果, 患者目前一般状态良好, 未见复

发和转移。

参考文献:

- [1]Oliva EA, Alvarez T, Young RH. Sertoli cell tumors of the ovary. A clinicopathological and immunohistochemical study of 54 cases[J]. Am J Surg Pathol, 2005, 29(2):143-156.
- [2]Zhao C, Brattauer GL, Barner R, et al. Comparative analysis of alternative and traditional immunohistochemical makers for the distinction of ovarian sertoli cell tumor from endometrioid tumors and carcinoid tumor: a study of 160 cases [J]. Am J Surg Pathol, 2007, 31(2):255-266.
- [3]唐云, 张雨涛, 李晓红, 等. 卵巢 Sertoli 细胞瘤临床病理分析[J]. 诊断病理学杂志, 2019, 26(4):235-238.
- [4]石涛, 徐东坡. 卵巢 Sertoli 细胞瘤 1 例[J]. 临床与实验病理学杂志, 2012, 28(10):1183-1184.
- [5]Kurman RJ, Carcangiu ML, Herrington CS, et al. WHO Classification of Tumours of Female Reproductive organs[M]. Fourth ed. Lyon: IARC Press, 2014:52.
- [6]D'Souza L, Burgis JT, Bacon JL, et al. A pure Sertoli cell tumor of the ovary in a 10-year-old female [J]. J Pediatr Adolesc Gynecol, 2007, 20(4):257-259.
- [7]Schultz KAP, Harris AK, Schneider DT, et al. Ovarian Sex Cord-Stromal Tumors[J]. JOP, 2016, 12(10):940-946.
- [8]Ravishankar S, Mangray S, Kurkchubasche A, et al. Unusual Sertoli cell tumor associated with sex cord tumor with annular tubules in Peutz-Jeghers syndrome: report of a case and review of the literature on ovarian tumors in Peutz-Jeghers Syndrome[J]. In J Surg Pathol, 2016, 24(3):269-273.
- [9]Ferry JA, Young RH, Engel G, et al. Oxyphilic Sertoli cell tumor of the ovary: a report of three cases, two in patients with the Peutz-Jeghers syndrome [J]. Int J Gynecol Pathol, 1994, 13 (3): 259-266.
- [10]Juusela AL, Naghi I, Thani S. Mayer-Rokitansky-Kuster-Hausers syndrome with bilateral ovarian Sertoli cell tumors: review of the literature and report of a rare case [J]. Female Pelvic Med Reconstr Surg, 2018, 24(5):e32-e34.
- [11]Taylor J, Clarke BA, Hasan NU, et al. Ovarian hilar proliferations resembling Sertoli cell tumours: microscopic neoplasms or non-neoplastic remnants?[J]. Histopathology, 2015, 68(4):596-602.
- [12]Deavers M, Malpica A, Liu J, et al. Ovarian sex cord-stromal tumors: an immunohistochemical study including a comparison of calretinin and inhibin[J]. Mod Pathol, 2003, 16(6):584-590.
- [13]Zhao CQ, Brattauer GL, Barner R, et al. Diagnostic utility of WT1 immunostaining in ovarian Sertoli cell tumor [J]. Am J Surg Pathol, 2007, 31(9):1378-1386.
- [14]Zhao CQ, Barner R, Vinh TN, et al. SF-1 is a diagnostically useful immunohistochemical marker and comparable to other sex cord-stromal tumor markers for the differential diagnosis of ovarian sertoli cell tumor [J]. Int J Gynecol Pathol, 2008, 27 (4): 507-514.

收稿日期: 2019-10-25; 修回日期: 2019-11-05

编辑/钱洪飞