

• 病例报告 •

卵巢甲状腺肿伴假性 Meigs 综合征并 CA125 升高 2 例报告

吴颜丞, 叶枝盈, 方茜, 林牧, 蒋行之, 余雯

doi:10.3969/j.issn.1671-0800.2024.06.035

【中图分类号】 R581.3 【文献标志码】 B 【文章编号】 1671-0800(2024)06-0820-03

卵巢甲状腺肿(struma ovary, SO)是一种起源于生殖细胞的高度特异性单胚层畸胎瘤,于 1888 年首次由 Bottlin 报道^[1-2]。在组织学上,SO 全部或超过 50%的成分由甲状腺组织组成^[1]。根据肿瘤含有甲状腺组织成分的多少可分为单纯性甲状腺肿(甲状腺组织 100%)和混合性甲状腺肿(甲状腺组织>50%)。卵巢肿瘤内的甲状腺组织大多数为良性,恶性转化及转移极为罕见,但可以发生囊性变及结节性甲状腺肿等改变,5%~8%的患者伴发甲状腺机能亢进表现^[3-4]。SO 占有卵巢成熟囊性畸胎瘤的 2%~3%,好发于育龄期女性,单侧发病居多^[4-5]。由于 SO 缺乏典型的临床症状和影像学表现,故术前诊断率极低,多经手术病理确诊^[6]。Meigs 综合征最早于 1937 年由 Meigs 定义,是指卵巢纤维瘤、卵泡膜细胞瘤、Brenner 瘤和颗粒细胞瘤合并腹腔积液和(或)胸腔积液,肿瘤切除后积液消失的临床综合征^[7]。除上述 4 种外的盆腹腔肿瘤合并胸腔积液和(或)腹腔积液,肿瘤切除后积液消失的现象被称为假性 Meigs 综合征^[8]。根据国内外报道,少部分 SO 患者亦可合并 Pseudo-Meigs 综合征^[3-6]。由于 SO 较为罕见,其影像学检查缺乏特异性,若合并 Pseudo-Meigs 综合征或伴 CA125 升高,极易与卵巢恶性肿瘤相混淆,从而引起误诊。本文对收治的 2 例 SO 伴 Pseudo-Meigs 综合征并 CA125 升高的患者进行总结,现报道如下。

1 病例

病例 1:女性,40 岁,10 年前因“腹痛 1 d”至宁波市第二医院就诊,妇科超声发现右侧卵巢肿瘤,遂行

腹腔镜右侧卵巢肿瘤剥除术,术后病理为“右卵巢囊性单胚层型畸胎瘤”。2022 年 9 月患者再次因“右侧附件占位”至本院就诊,妇科超声提示“右卵巢大小约 116 mm×99 mm×66 mm,内见数个无回声,较大两个分别约 62 mm×51 mm×54 mm、56 mm×45 mm×46 mm,内液清”,见图 1。CA125:398.90 U/ml,甲状腺功能正常。入院后肺部 CT 提示“右侧胸腔积液”,胸水穿刺脱落细胞学检查未见恶性肿瘤细胞,于 2022 年 9 月 21 日行腹腔镜右附件切除术,术后病理:右附件 SO(囊性单胚层型畸胎瘤),术后 3 d 恢复良好出院。术后 1 个月患者至本院复查 B 超提示“胸腔积液消失,盆腔未见明显积液”,CA125 正常范围。

病例 2:女性,70 岁,因“胸闷、气急 20 余天”于 2015 年 1 月至本院就诊。妇科检查发现宫体后方可及一大小约 10 cm 囊实性包块,界清、活动度可,无明显压痛。外院肺部 CT 及全腹 CT:盆腔囊实性占位,卵巢癌考虑;双侧胸腔积液,两下肺膨胀不全。妇科 B 超:盆腔内偏右侧混合回声包块,内见范围约 98 mm×54 mm 的偏实性回声区域,并可见数个无回声区,其中较大者约 71 mm×59 mm,盆腔积液深 55 mm。进一步行超声造影后,诊断为卵巢恶性病变首先考虑,局部伴液化坏死,见图 2。CA125:4 011 U/ml,甲状腺功能正常。胸腔穿刺引流脱落细胞学检查未见恶性肿瘤细胞。于 2015 年 1 月 28 日行“筋膜外全

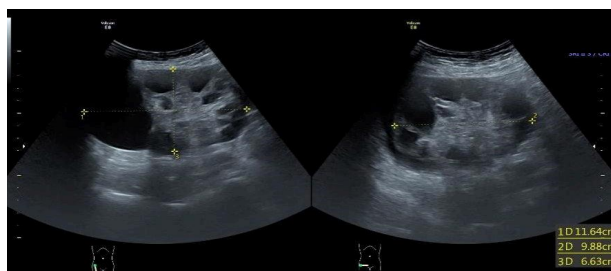
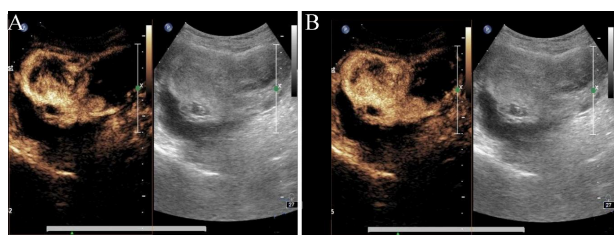


图 1 囊性卵巢甲状腺肿超声图

作者单位: 315010 宁波,宁波市第二医院

通信作者: 叶枝盈,Email:2501031391@qq.com



注:A与B分别为外周注入对比剂后第20秒、第23秒超声造影图像(实性部分整体呈向心性高增强,快进快出,局部区域始终未见对比剂灌注)

图2 囊实性卵巢甲状腺肿超声造影图

子宫+双侧附件切除术+大网膜切除术”,术后常规病理回报“右附件SO、左输卵管及左卵巢组织、慢性宫颈炎、萎缩子宫、大网膜组织”。术后1个月复查CA125降至正常范围,盆腔超声及胸腔超声未提示积液。术后随访至今未见肿瘤复发。本研究获得宁波市第二医院医学伦理委员会批准,所有研究对象均同意参加本研究并签署书面知情同意书。

2 讨论

SO大多数为良性病变,恶变较为罕见^[9]。其病因可能是由于在雌激素的作用下,甲状腺组织在卵巢组织中进一步增生导致^[10]。国内学者报道其平均发病年龄为45.1岁^[11]。SO的临床表现也缺乏特异性,较常见的为下腹部肿物、腹痛、异常子宫出血^[12]。本研究中2例患者均合并胸腹水及CA125升高。CA125升高可能与腹水及肿瘤刺激腹膜、大网膜及肠系膜间皮细胞分泌产生相关^[13]。1例患者术中腹水达2000 ml,其血清CA125高达4011 U/ml,腹水CA125值为233 U/ml,胸水未行CA125检测。另一例患者胸水中CA125值为383.8 U/ml,与血清CA125水平相当,腹水未行CA125检测。王月梅等^[14]总结近10年我国妇科专家发表的近60例病例报道认为,SO合并Pseudo-Meigs综合征的血清肿瘤标志物CA125、CA199不一定高于正常范围值。而另一项回顾性研究发现,在纳入该研究的229例患者中有21例同时出现腹水和血清CA125水平升高,其中4例合并假性Meigs综合征。该研究进一步通过线性回归发现血清CA125水平与腹水量呈中度正相关^[15]。腹水量与CA125升高是否具有一定相关性需进一步研究。

SO的典型MR表现为囊腔信号混杂,T₁WI呈稍高信号,T₂WI呈低信号^[16]。在超声图像中,SO可

表现为无回声或囊实性的附件占位,部分出现典型畸胎瘤表现,如“面团征”、“壁立结节伴声影”或“脂液分层征”^[16]。本文1例超声图像表现为卵巢增大合并多发囊性占位,不合并典型畸胎瘤表现,较难与卵巢囊腺瘤、单纯性囊肿相鉴别。另一例表现为囊实性肿块,造影后实性部分呈向心性增强,快进快出,局部实性区域无对比剂灌注,故倾向卵巢恶性肿瘤,见图2。

SO预后良好,极少数发展为卵巢甲状腺癌。手术切除是首选治疗方式。2例患者在肿瘤切除后胸腹水很快消失,CA125也随之下降,均在术后1个月复查时下降至正常范围。

综上所述,SO是一种罕见的特殊类型卵巢畸胎瘤,临床诊断较困难。若合并胸腹水且伴CA125升高时,易被误诊为卵巢恶性肿瘤。手术切除是其首选治疗方式。对于此类患者应详细问诊、查体及完善辅助检查,术中常规送快速病理检查,以减少因诊断思维不全面引起漏诊及误诊。

利益冲突 所有作者声明无利益冲突

参 考 文 献

- [1] HÖHN A K, BRAMBS C E, HILLER G G R, et al. 2020 WHO classification of female genital tumors[J]. Geburtshilfe Frauenheilkd, 2021, 81(10): 1145-1153.
- [2] WEI S Z, BALOCH Z W, LIVOLSI V A. Pathology of struma ovarii: A report of 96 cases[J]. Endocr Pathol, 2015, 26(4): 342-348.
- [3] KHEDIRI Z, MBARKI C, BEN ABDELAZIZ A, et al. Struma ovarii: clinical presentations of an uncommon tumor[J]. Int J Case Rep Imag, 2012, 3(4): 10-14.
- [4] OUTWATER E K, SIEGELMAN E S, HUNT J L. Ovarian teratomas: Tumor types and imaging characteristics[J]. Radiographics, 2001, 21(2): 475-490.
- [5] STEFANOPOL I A, PETECARIU A, BAROIU L, et al. Giant benign struma ovarii with high-grade fever, elevated CA 125, and hormonal function in an adolescent patient[J]. Children (Basel), 2023, 10(5): 856.
- [6] 智明春,赵学英,李炜,等.25例卵巢甲状腺肿经阴道超声特征分析[J].中国病案,2020,21(7):102-105.
- [7] CHAM Y, ROHH J, YOU S K, et al. Meigs' syndrome with elevated serum CA 125 level in a case of ovarian fibrothecoma[J]. Eur J Gynaecol Oncol, 2014, 35(6): 734-737.
- [8] MIYAWAKI E, NAITO T, KASAMATSU Y. Pseudo-meigs's syndrome[J]. BMJ Case Rep, 2021, 14(2): e241337.
- [9] GOFFREDO P, SAWKA A M, PURA J, et al. Malignant struma ovarii: A population-level analysis of a large series of 68 patients[J]. Thyroid, 2015, 25(2): 211-215.
- [10] 王艳艳,尹福波,焦琦琦.卵巢甲状腺肿2例并文献复习[J].现代妇产科进展,2006,15(1):72-73.

- [11] 李昌忠.35 例卵巢甲状腺肿的临床病理诊断分析[J].中国医药指南,2013,11(17):529.
- [12] 席亚平,王东红,柏永华,等.卵巢甲状腺肿 10 例报道并文献复习[J].海南医学,2018,29(6):865-868.
- [13] SHRIMALI R K, SHAIKH G, REED N S. Malignant struma ovarii: The west of Scotland experience and review of literature with focus on postoperative management[J]. J Med Imaging Radiat Oncol, 2012, 56(4): 478-482.
- [14] 王月梅,王雅宁,殷广洁,等.卵巢甲状腺肿伴 Pseudo-Meig's 综合

- 征并 CA125 升高病例报道及临床分析[J].妇产与遗传(电子版), 2020, 10(4):24-27.
- [15] LI S, HONG R, YIN M, et al. Struma ovarii with synchronous ascites and elevated CA125 level: A retrospective cohort study[J]. Acta Oncol, 2023, 62(8): 889-896.
- [16] 霍梦娟,尚晓静,范森,等.卵巢甲状腺肿的影像学特征[J].中山大学学报(医学科学版),2016,37(2):289-294.

收稿日期:2024-01-15

(本文编辑:陈志翔)

内膜肉瘤 3 例报告

章红姣,俞利辉

doi:10.3969/j.issn.1671-0800.2024.06.036

【中图分类号】 R734.2 【文献标志码】 B 【文章编号】 1671-0800(2024)06-0822-03

内膜肉瘤(intimal sarcoma, IS)是一种十分罕见的高度恶性肿瘤,发病部位常见于肺动脉、主动脉及其分支^[1]。肿瘤以血管腔内呈息肉样生长为主,沿受累血管分支向远端蔓延,常堵塞血管腔,临床症状多样,易被误诊为血管栓塞。鉴于该疾病的极低发生率,关于该肿瘤的研究国内外文献都以个例报道的形式呈现。为进一步提高对该肿瘤的认识,笔者收集了 3 例 IS,分析其临床病理特征、免疫组织化学表型及分子遗传学改变,旨在为临床诊断提供更多的依据和线索,现报道如下。

1 病例

病例 1,女性,43 岁,患者走楼梯至二楼时出现胸闷气急,伴心悸 1 个月余,休息数分钟后缓解。症状于活动后反复发作,夜间侧卧位时胸闷气促较明显。心脏彩超示左房内可见一中等回声团,大小约 5.1 cm×3.4 cm×3.5 cm,蒂附着于房间隔,瘤体紧贴二尖瓣前叶,蒂宽约 2.2 cm。术中见左心房内房间隔处广基肿块,肿块呈灰白鱼肉样,易碎,大小约 5.0 cm×5.0 cm×4.0 cm。基底部约 3 cm,由房间隔向内至二尖瓣前瓣及乳头肌且关系致密,局部无法分离。受累二尖瓣前瓣肿瘤脆化,质地差,切除大

部肿瘤注水试验可见二尖瓣启闭不佳。

病例 2,女性,46 岁,因剧烈胸背部疼痛至本院检查,增强 CT 发现纵隔占位。胸部 CT 平扫+增强示左后纵隔近胸主动脉见团片状低密度影,大小约 5.5 cm×2.8 cm,界尚清,CT 值约 40 HU,增强病灶边缘强化明显,其内低密度影呈轻度强化,胸主动脉稍向前移。

病例 3,女性,63 岁,患者 1 个月余前无明显诱因下出现左肋肋痛,呈阵发性刺痛,自诉上楼时加重,休息后缓解,偶伴胸闷。肺动脉 CTA 示主肺动脉及左右肺动脉主干管壁增厚、管腔狭窄,以主肺动脉及左肺动脉主干为著。术中见肺动脉主干狭窄明显,剖开肺动脉及右室流出道,见肺动脉内膜增厚明显,靠近右室流出道部位可见疏松鱼肉样组织,考虑恶性肿瘤可能性大,未见明确肺动脉瓣结构,增厚内膜向左右远端蔓延。

病理检查:肉眼见肿瘤组织均为灰白,鱼肉样,质地软,病例 1 可见切面呈胶冻状。镜检:3 例低倍镜下肿瘤细胞均呈梭形,部分区上皮样,呈束状、编织状或不规则排列,见图 1;高倍镜下肿瘤细胞异型明显,可见核分裂像(图 2)及坏死,偶见瘤巨细胞,可见多量薄壁血管。

免疫组织化学:3 例标本肿瘤细胞 VM 均阳性,见图 3。病例 1 肿瘤细胞还可表达 Fli-1 和 CD34,MDM2 则局灶阳性;病例 3 肿瘤细胞 Fli-1(图 4)、

作者单位: 311300 杭州,杭州市临安区第一人民医院

通信作者: 章红姣,Email:56387455@qq.com