

· 论著 ·

以腹水为首发症状的卵巢幼年型颗粒细胞瘤1例及文献复习*

1. 苏州大学附属第三医院 (江苏省常州市第一人民医院消化内科) (江苏 常州 213000)

2. 江苏省常州市第二人民医院 (江苏 常州 213000)

马 亮¹ 庄 耘¹ 张力文² 丁炎波¹ 陈建平¹

【摘要】目的 通过分析以腹水为首发症状的卵巢幼年型颗粒细胞瘤(JGCT)患者的临床资料,并查阅相关文献资料,为临床诊断提供参考依据。方法 系统回顾1例以腹水为首发症状的JGCT患者的临床表现、腹水性质、影像学及腹腔镜下卵巢肿瘤病变特征、治疗方法及预后,并结合相关文献复习讨论。结果 患者女,19岁,表现为进行性腹胀加重伴有纳差不适,门诊B超提示腹盆腔大量积液,入院腹穿提示渗出液,淋巴细胞升高为主,腹水肿瘤及血清CA125显著升高,雌二醇轻度升高,腹部CT示左侧附件区畸胎瘤,右侧附件区囊实性变?行腹腔镜探查及术后病理免疫组化示左侧(卵巢)囊性成熟性畸胎瘤,右侧卵巢幼年型颗粒细胞瘤,分期为IC期,术后给予TP方案化疗,随访6个月至今,无复发。结论 对以不明原因腹水为首发症状的年轻女性,需高度警惕JGCT可能,应常规进行妇科、盆腔超声或影像学及腹腔镜检查,以及时诊断及治疗。

【关键词】卵巢幼年型颗粒细胞瘤;腹水;诊断

【中图分类号】R445.3; R737.3

【文献标识码】A

【基金项目】国家自然科学基金青年项目(81700500);常州市科技局应用基础研究(CJ20160031)

DOI: 10.3969/j.issn.1009-3257.2019.03.016

Massive Ascites as the Only Sign of Ovarian Juvenile Granulosa Cell Tumor in an Adolescent: A Case Report and a Review of the Literature*

MA Liang, ZHUANG Yun, ZHANG Li-wen, et al., Department of Gastroenterology, The First People's Hospital of Changzhou, Third Affiliated Hospital of Suzhou University, Changzhou 213000, Jiangsu Province, China

【Abstract】Objective To analyze the clinical data of patients with ovarian juvenile granulosa cell tumor (JGCT) with ascites as the first symptom, and to review the relevant literatures, and to provide reference for clinical diagnosis. Methods The clinical manifestations, ascites properties, imaging and laparoscopic ovarian tumor features, treatment methods and prognosis of ovarian JGCT patients with ascites as the first symptom were retrospectively analyzed and discussed with the literature review. Results A 19-year old girl showed an increase in progressive abdominal distension accompanied by anorexia discomfort and outpatient B ultrasound prompted a large number of pelvic fluid. The ascites nature of the patient was the effusion of lymphocyte elevation. Ascites tumor and serum CA125 Significantly increased. Abdominal CT showed left attachment area teratoma, right attachment area capsule solid change? Laparoscopic exploration confirmed that the patient's right ovarian pathology immunohistochemistry was juvenile granulosa cell tumor, stage for the IC period. Patients underwent TP regimen chemotherapy, followed up for 6 months to date without recurrence. Conclusion Taken together, we should be highly vigilant the juvenile granulosa cell tumor with massive ascites as the first clinical manifestation.

【Key words】Ovarian Juvenile Granulosa Cell tumor; Ascites; Diagnosis

卵巢幼年型颗粒细胞瘤(ovarian juvenile granulosa cell tumor, JGCT)是性索间质肿瘤的一个亚型,占卵巢颗粒细胞瘤的5%^[1],其伴发腹水十分罕见。本文将收治的1例以腹水为首发症状的卵巢JGCT患者资料报道如下,并结合相关文献资料进行分析。

1 临床资料

患者,女,19岁,未婚,因腹胀、纳差1周,以“腹水待查”收入院,患者于入院前1周出现腹胀、食欲减退,并伴有双下肢浮肿,病情进行性加重,发病前发热1次,无畏寒、寒战,无盗汗,体温自行消退,门诊B超提示腹盆腔大量积液,故以“腹水待查”收入科室。既往体健,无其他病史可询。入院查体:口温:36.3℃,脉搏:100次/分,呼吸:20次/分,血压:120/84mmHg,发育良好,营养欠佳,无贫血、

作者简介:马 亮,男,消化内科专业,医师,主要研究方向:肝胆胰腺疾病

通讯作者:陈建平

黄疸, 心肺(-), 腹膨隆, 无压痛, 移动性浊音阳性, 双下肢压迹阳性。入院后完善相关检查示血常规: WBC: $4.81 \times 10^9/L$, N%: 50.8%, RBC: $5.04 \times 10^{12}/L$, Hb: 149.0g/L, PLT: $390 \times 10^9/L$ 。肿瘤指标: CA125: 39.87U/ml, 余下(AFP+CEA+CA199+CA153)均正常范围。性激素: 雌二醇60.0Pg/ml, 孕酮: 1.26ng/ml, 睾酮: 1.49ng/ml, 余下(泌乳素/黄体激素/促卵泡成熟激素)正常范围。便常规、尿常规、肝肾功、甲状腺功能3项未见异常。传标(甲乙丙戊)、PPD试验、结核抗体、T-spot以及血管炎/关节炎抗体及抗核抗体谱均阴性。胃镜、结肠镜未见异常。先后两次行复查放出1500ml黄色微混液体, 二次腹水均提示渗出液, 示腹水红细胞: $1000 \times 10^6/L$, 白细胞: $44 \times 10^6/L$, 中性粒细胞百分比: 39.2%, 淋巴细胞百分比: 60.8%, 腹水生化: 总蛋白: 59.8g/L, 葡萄糖: 5.1mmol/L, 乳酸脱氢酶: 621u/L, ADA: 4.3u/L, CRP: 10.3mg/L, 腹水肿瘤细胞: CA125: 601.1U/ml, 余下(AFP+CEA+CA199)及病理找脱落细胞均阴性。行腹部CT平扫+增强示左侧附件区畸胎瘤, 右侧附件区囊实性变? 腹盆腔大量积液(如图1-2)。于2017年01月13日转科行腹腔镜探查示左侧卵巢肿瘤, 大小5×4cm, 囊实性, 表面光滑, 右侧卵巢无正常形态, 见菜花样肿瘤5×5cm, 包膜破裂, 大网膜表面见数枚粟米样结节, 术中冰冻切片是卵巢性索间质肿瘤, 故行右输卵管-卵巢切除术, 左卵巢畸胎瘤切除术, 大网膜切除术。术后病理示左侧(卵巢)囊性成熟性畸胎瘤, 网膜血管扩张、充血, 右侧卵巢性索间质肿瘤伴囊性变(如图3-4), 分型为幼年型颗粒细胞瘤, 免疫组化I2017-163: AE1/AE3(-), CR(+), EMA(-), Inhibin-a(+), CD99(±), SMA(-), Vimentin(+), Melan-A(-), CD10(-), Ki67(约5%+) (如图1-4), 提示幼年型颗粒细胞IC期, 术后给予TP方案(力朴素+奥先达)化疗6次, 随访6个月至今, 未见复发。

2 讨论

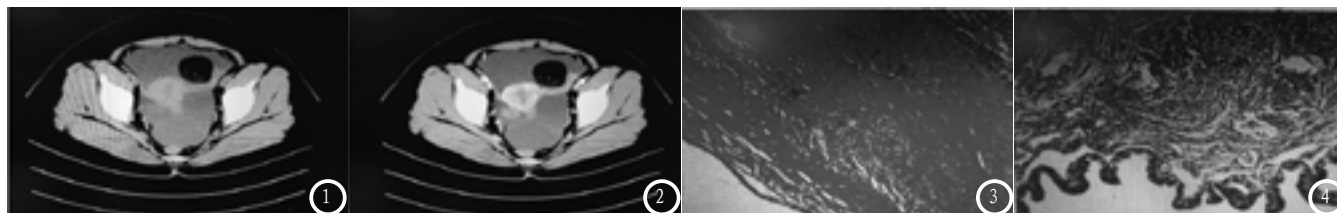


图1-2 CT平扫示左侧卵巢实性点状, 形态不规则, 增强后明显强化, 右侧卵巢囊性点状, 增强后周围稍强化; 图3-4 左卵巢囊性成熟畸胎瘤, 网膜血管扩张、充血, 右侧卵巢性索间质肿瘤伴囊性变

引起腹水的病因很多, 较常见于肝硬化、胃肠道肿瘤、结核性腹膜炎等, 因多伴有腹胀等明显的消化道症状, 故往往以腹水待查收入消化内科。本患者为年轻女性, 以腹水为首发症状, 故入院后以腹水为线索进行检查。入院后腹穿提示为淡黄色渗出液, 血清-腹水白蛋白梯度(SAAG)小于11g/L, 故排除肝硬化门脉高压性腹水^[2]。患者既往无结核病史, 病程中无午后低热、盗汗等结核中毒症状, 相关结核检查如PPD、T-SPOT及腹水ADA均阴性, 故不支持结核性腹膜炎^[3]。另外随后的内镜和影像学检查亦排除消化道肿瘤可能。本例患者血清及腹水肿瘤指标CA125显著升高, 余下肿瘤指标正常范围, 加之患者为年轻女性, 故进一步完善腹部CT提示左侧附件区畸胎瘤, 右侧附件区囊实性占位, 性质不明, 综上, 该患者高度怀疑附件区肿瘤可能, 遂进一步行腹腔镜探查见右侧卵巢无正常形态, 见菜花样肿瘤5×5cm, 包膜破裂, 大网膜表面见数枚粟米样结节, 于内镜下切除, 最后根据病理及免疫组化结果, 明确诊断为幼年型颗粒细胞瘤, 分期为IC期。

卵巢幼年型颗粒细胞瘤(JGCT)最早于1977年由Scully报道, 多发于卵巢单侧, 可呈囊性、实性或囊实性^[4]。据报道^[1, 5-9], JGCT患者平均年龄为13岁, 44%发生于10岁以内, 34%位11~20岁, 大于30岁的患者仅占3%, 主要表现为雌激素增多引起的相关症状, 如性早熟、月经异常, 另外, 极少数患者分泌雄性激素可有男性化表现。本例患者年龄为19岁, 处于卵巢JGCT好发年龄, 但该病人体内雌激素水平正常, 故无雌激素增高的特异性临床表现, 另外以大量腹水为首发症状的病例十分罕见, 近年来相关文献报道为6例^[5-9]。因此给早期诊断带来一定困难。

由于JGCT十分罕见, 人们对其生物学行为尚未有充分认识, 因此临床上多采用以手术为主, 结合化疗和放疗的综合治疗。文献报道^[6, 10], I期卵巢JGCT患者经手术切除治疗后预后明显改善, 10年无瘤生存率可达80%~90%。因此, 对于年轻、早期、有生育要求的患者, 最主要治疗方法是患侧切除。(下转第93页)