

卵巢甲状腺类癌1例并文献复习

赵文娜, 姚 勤*

青岛大学附属医院妇科, 山东 青岛

收稿日期: 2025年3月22日; 录用日期: 2025年4月15日; 发布日期: 2025年4月22日

摘 要

目的: 探讨卵巢甲状腺类癌的临床表现、诊断及治疗。方法: 汇报1例青岛大学附属医院妇科诊治的卵巢甲状腺类癌病例, 分析其临床资料、影像学检查及治疗。并进行文献复习及总结。结果: 卵巢甲状腺类癌是一种罕见的卵巢肿瘤, 发病率低, 呈低度恶性, 目前主要通过单个病例报道文献了解该疾病, 目前治疗方案首选手术治疗。本例卵巢甲状腺类癌病例行腹腔镜右侧附件切除术, 术后定期随访, 未见复发或远处转移。结论: 卵巢甲状腺类癌发病率低, 首选手术治疗, 治疗方案取决于年龄、生育情况、术中情况、全身情况。

关键词

卵巢甲状腺类癌, 临床表现, 诊断, 治疗

Ovarian Strumal Carcinoid: A Case Report and Literature Review

Wenna Zhao, Qin Yao*

Department of Obstetrics and Gynecology, The Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

Received: Mar. 22nd, 2025; accepted: Apr. 15th, 2025; published: Apr. 22nd, 2025

Abstract

Objective: To explore the clinical manifestations, diagnosis and treatment of ovarian strumal carcinoid. **Methods:** A case of ovarian strumal carcinoid diagnosed and treated by gynecology department of the Affiliated Hospital of Qingdao University was reported. The clinical data, imaging examination and treatment were analyzed, making the literature review and summary. **Results:** Ovarian strumal carcinoid is a rare ovarian tumor with a low incidence and mostly low grade malignancy. At present, this disease is mainly understood through single case reports and literatures. At present,

*通讯作者。

surgical treatment is the preferred treatment. This case of ovarian strumal carcinoid underwent laparoscopic right side adnexectomy and was followed up until now. No recurrence or distant metastasis was observed. Conclusion: The incidence of ovarian goiter is low; the first choice is surgical treatment; treatment depends on age, fertility, intraoperative conditions and systemic conditions.

Keywords

Ovarian Strumal Carcinoid, Clinical Manifestation, Diagnosis, Treatment

Copyright © 2025 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 引言

类癌是起源于神经外胚层的一种肿瘤,通常生长缓慢,为低度恶性,又被称为神经内分泌肿瘤。胃肠道以及呼吸系统是其常见的发生部位。原发性卵巢类癌非常罕见,占有类癌的 0.5%~1.7%,卵巢甲状腺类癌则为其的一种亚型,占 60%~70% [1]。卵巢甲状腺类癌是一种以甲状腺滤泡组织与类癌组织混合存在为特征的极为罕见的生殖细胞肿瘤,在卵巢恶性肿瘤中不足 0.1% [2]。发病年龄多在 20~78 岁,平均 53 岁,多发生于单侧卵巢,以右侧更为常见[1]。卵巢甲状腺类癌的临床诊疗挑战源于其罕见性及非典型表现。鉴于该病发病率极低,且临床症状和体征缺乏特异性,术前诊断存在困难,临床实践中误诊和漏诊率较高。

2. 病例资料

患者,女,42 岁,孕 1 产 1,2023 年 11 月 1 日因“发现盆腔肿物 3 年”入青岛大学附属医院。患者 3 年前于外院体检,行 B 超发现盆腔肿物,大小约 3 cm,未予特殊处理,定期复查,肿物缓慢增长。1 天前于我院复查,行 B 超检查发现提示:右附件区见 5.1 × 4.0 × 4.3 cm 不均质回声团,边界清,中心见不规则无回声区,内见条状血流信号,伴轻度腹胀,无腹痛,无阴道流血流液,无头晕乏力,无恶心呕吐,无尿频便秘等不适,为求手术治疗收入院。入院时患者一般情况好,神志清,精神可,饮食睡眠可,大小便无明显异常,体重无明显改变。患者既往体检,1 年前因阑尾炎行腹腔镜下阑尾切除术,否认高血压、糖尿病、心脏病及肾脏疾病史,否认甲亢、甲减及风湿免疫性疾病史,否认食物药物过敏史。患者平素月经规律,周期为 23 天,经期为 3 天,经量一般,无痛经现象,末次月经 2023 年 10 月 24 日。个人史及家族史无特殊。查体:体温 36.5℃,心率 85 次/分,呼吸 16 次/分,血压 96/71 mmHg,身高 165 cm,体重 60 kg,心肺查体正常,肝脾未触及异常,腹软,无压痛及反跳痛。妇科查体:外阴发育正常,阴道通畅,宫颈轻糜样,子宫前位,大小正常,质中,活动,无压痛,右侧附件区可扪及实性为主包块,约 5 cm,活动,无压痛,左侧附件未扪及明显异常。三合诊:双侧主骶韧带弹性可,子宫直肠陷凹未扪及明显触痛结节。辅助检查:2023 年 10 月 31 日经阴妇科超声:子宫前位,约 4.1 × 3.5 × 3.2 cm,包膜尚光滑,外形尚规则,肌层回声欠均匀,后壁见 0.5 × 0.4 cm 低回声结节,边界清。内膜厚约 0.5 cm,内回声尚均匀,宫腔内未见明显异常回声。宫颈大小尚可,回声欠均匀,CDFI:宫颈内血流分布未见明显异常。左侧卵巢 3.3 × 1.6 cm,内未见明显异常回声。右侧卵巢未探及。右附件区见 5.1 × 4.0 × 4.3 cm 不均质回声团,边界清,中心见不规则无回声区,CDFI:内见条状血流信号。子宫直肠陷凹未见明显液性回声。超声提示子宫肌瘤;右附件区不均质回声团,考虑卵巢来源可能。

3. 诊疗经过

入院后完善相关检验及辅助检查, 2023 年 11 月 01 日性激素 6 项测定: 雌二醇为 290.08 pmol/L, 卵泡刺激素为 4.57 IU/L, 促黄体生成素为 2.85 IU/L, 孕酮为 0.53 nmol/L, 泌乳素为 311.54 mIU/L, 睾酮为 0.74 nmol/L。2023 年 11 月 01 日抗缪勒氏管激素测定: 1.80 ng/ml。2023 年 11 月 01 日女性肿瘤标记物: 糖类抗原 19-9 为 23.65 U/ml, 糖类抗原 15-3 为 6.07 U/ml, 人附睾蛋白 4 为 54.94 pmol/L, 糖类抗原 125 为 16.18 U/ml, 特异 β 人绒毛膜促性腺激素为 <0.10 mIU/ml, 胃泌素释放肽前体为 42.45 pg/ml, 鳞状细胞癌相关抗原为 2.16 ng/ml, 神经元特异性烯醇化酶为 13.99 ng/ml, 糖类抗原 72-4 为 4.58 U/ml, 甲胎蛋白为 2.01 ng/ml, 癌胚抗原为 3.29 ng/ml。2023 年 11 月 01 日十二通道常规心电图检查: 窦性心律, ST-T 改变。2023 年 11 月 02 日胸部 CT 平扫: 双肺散在少许条索样高密度影, 右肺散在小结节影, 直径约 2~4 mm。宫颈人乳头瘤病毒及宫颈液基细胞学提示未见明显异常。血常规、尿常规、大便常规、肝肾功、电解质、血凝常规及艾梅乙均未见明显异常。术前诊断: 盆腔肿物性质待诊: 卵巢肿瘤? 子宫肌瘤阑尾切除术后。排除手术禁忌后患者于 2023 年 11 月 03 日在气管插管全身麻醉下行腹腔镜右侧输卵管卵巢切除术, 术中探查见: 盆腔内无腹水, 子宫体正常大小, 右侧卵巢见直径约 5 cm 实性肿物, 质硬, 双侧输卵管及左侧卵巢外观未见明显异常, 肠管粘连于左侧腹壁。术中冰冻病理提示右卵巢考虑类癌可能性大, 确诊待石蜡及免疫组化; 另见少量甲状腺滤泡上皮。术中标本肉眼见: 右输卵管长 5.5 cm, 最大径 0.8 cm, 伞端可见。右卵巢呈囊实性, 大小 5 × 4 × 2.7 cm, 切面灰黄实性。术后病理回报: (右卵巢)符合甲状腺肿类癌, 另见输卵管组织。免疫组化: Ckpan(+), CD56(+), CK7(-), CK19(部分+), Syn(+), INSM1(+), SSTR2(3+), TTF-1(-), Pax-8(部分+), Ki-67(+, 1%)。2023 年 11 月 06 日患者一般情况良好, 准予出院。2024 年 02 月 01 日患者于协和病理科会诊病理示: (右卵巢)符合甲状腺肿类癌, 输卵管未见特殊。免疫组化: CK7(局部+), CD56(+), CK(+), CK19(部分+), Syn(+), INSM1(+), SSTR2(3+), Ki-67(index < 2%), TTF-1(部分+), Pax-8(部分+)。最终诊断为卵巢甲状腺肿类癌(IA 期)。2024 年 05 月 30 日于我院复查, 自述偶感右上腹隐痛, 余无明显不适, 行超声检查提示子宫小肌瘤; 左侧卵巢囊性回声, 考虑黄体可能。完善全腹部 CT 平扫提示: 右侧附件区术后改变, 结肠肠管扩张积液。女性肿瘤标记物: 糖类抗原 19-9 为 8.09 U/ml, 糖类抗原 15-3 为 4.93 U/ml, 人附睾蛋白 4 为 39.62 pmol/L, 糖类抗原 125 为 9.78 U/ml, 胃泌素释放肽前体为 50.74 pg/ml, 鳞状细胞癌相关抗原为 0.77 ng/ml, 神经元特异性烯醇化酶为 8.69 ng/ml, 糖类抗原 72-4 为 1.72 U/ml, 甲胎蛋白为 1.52 ng/ml, 癌胚抗原为 0.87 ng/ml。甲功三项: 游离三碘甲腺原氨酸为 4.00 pmol/L, 游离甲状腺素为 14.10 pmol/L, 促甲状腺激素为 2.53 mIU/L。建议定期复查。患者定期于我院门诊随访复查, 至今未见复发, 预后好。

4. 讨论

4.1. 临床表现

大多数患者以体检发现无症状性盆腔占位为首表现, 通常经妇科超声等影像学检查偶然发现盆腔占位性病变而入院。少数患者因肿瘤体积增大导致盆腔脏器压迫症状(如排尿困难、排便障碍)或神经受累表现(如下肢放射性疼痛)而就诊。亦有部分患者因卵巢肿瘤蒂扭转入院检查。李等人对在协和医院妇产科就诊的 33 例卵巢甲状腺类癌患者的临床资料进行回顾性分析发现, 肿块的平均大小为 6.7 ± 3.0 cm, 本研究所发现的肿块大小与此相符[3]。有学者总结了 50 例卵巢甲状腺类癌患者的临床资料, 其中 35% 出现类固醇激素分泌的临床症状, 如子宫内膜增生、多毛症、男性性腺增生等[4]。Davis 等进行的原发性卵巢类癌病例回顾研究发现, 仅有 13% 的患者有类癌综合征表现, 即由肿瘤分泌的 5-羟色胺、组胺、激肽等作用于全身系统引起的面部潮红、水样腹泻、哮喘发作、血压降低、水肿和腹水等症状, 极少数患者

会并发类癌性心脏病,即出现三尖瓣狭窄及反流[5]。有文献报道,岛型类癌患者伴发类癌综合征比例最高,约占33%,且其发生肿瘤转移的概率显著增高,预后也更差[6]。值得注意的是,便秘作为卵巢甲状腺类癌的早期临床表现正逐渐被关注。MULLER等发现小梁型及甲状腺型类癌患者更有可能以便秘为主要症状,并表明该症状可能与肿瘤细胞分泌的PYY(peptide YY)有关,PYY是一种含36个氨基酸的肽类激素,由类癌细胞摄取的色氨酸转化而来,存在于正常人的结肠黏膜,具有抑制肠道分泌及蠕动的功能[7]。而MATSUDA等报道1例切除肿瘤后便秘即消失,术后10个月再次出现药物不能缓解的便秘,复查CT提示肿瘤肝转移,可见术后复发便秘的患者需排除肿瘤的复发与转移[8]。

4.2. 诊断

卵巢甲状腺类癌患者的血清肿瘤标记物多为正常或轻度升高,部分患者可有血或尿5-羟吲哚乙酸(5-HIAA)升高,少数卵巢类癌患者可有CA125、CA199或CEA水平升高。值得注意的是,上述指标的升高也可能是其合并成分或其他临床症状导致。卵巢甲状腺类癌患者的血清肿瘤标志物常表现为正常或轻度异常。部分患者可检测到血或尿5-羟吲哚乙酸(5-HIAA)水平升高。此外,少数患者可能出现CA125、CA199或CEA等肿瘤标志物的异常升高,但需注意这些标志物的异常升高可能与肿瘤合并其他成分或其他临床症状相关。TAKEMORI等报道1例卵巢甲状腺类癌伴同侧皮样囊肿和黏液性囊腺瘤,患者术前血清CA125、CA199及CEA水平均显著升高,术后下降至正常范围,而免疫组化结果表明肿瘤组织中该类标志物均呈阴性,提示上述指标的升高可能由黏液性囊腺瘤引起[9]。YAMAGUCHI等报道1例血清CEA水平升高同时伴有便秘的患者,使用缓泻剂后便秘症状缓解、CEA水平下降,肿瘤切除后便秘症状消失、CEA水平降至正常,而肿瘤组织中CEA检测呈阴性,表明该患者CEA水平的升高可能是由便秘引起的结肠炎症所致[2]。临床实践中,应对上述标志物的临床意义进行综合解读,避免单一指标导致的误判。

卵巢甲状腺类癌的影像学表现缺乏特异性。超声检查多显示单侧囊性或囊实性占位,回声特征与卵巢恶性肿瘤存在重叠。CT影像学特征表现为盆腔内不规则囊实性占位性病变,呈现混杂密度影且边界清晰,病灶内或边缘可见片状、壳样钙化灶。增强CT扫描显示病灶实性成分具有明显血管生成特征,呈现显著持续强化,部分可见粗大供血动脉穿行其中,而坏死液化区域相对少见。MRI上肿块实性部分表现为大小不等的不规则结节,呈“葡萄样”,T1WI呈低或稍低信号,T2WI呈高或稍高信号,肿块内见颗粒样T2WI低信号及纤细分隔样结构[10],囊腔内成分复杂,当囊液呈粘稠胶样时CT呈高密度,MRI中T1WI呈低信号、T2WI呈极低信号,称此为“真空现象”[11][12]。

影像学检查在卵巢甲状腺类癌的定性与定位评估中具有重要参考价值,但其对病变性质的鉴别能力存在局限性,单纯依赖影像学检查难以实现精准诊断。术后组织病理学检查及免疫组化分析仍是确诊的金标准。根据肿瘤组织学表现可分为4型:岛状型、梁状型、甲状腺肿型及黏液型,其中以岛状型最为常见,其次为梁状型和甲状腺肿型[13]。卵巢黏液型类癌瘤被认为与其他类型的原发性卵巢类癌肿瘤不同,它的行为类似于侵袭性恶性肿瘤[14]。卵巢甲状腺类癌的组织学特征表现为甲状腺滤泡样结构与神经内分泌肿瘤成分的混合存在。该肿瘤同时具备甲状腺肿的形态学特征及类癌的生物行为特性。约有1/2合并有成熟性囊性畸胎瘤,少数合并有黏液性囊腺瘤[15][16]。类癌组织与甲状腺组织既可以密切混合,也可以仅在交界处混合。组织病理学上,卵巢甲状腺类癌的肿瘤细胞呈均一性细胞学表现,多为圆形、立方形或矮柱状,细胞质丰富且呈嗜酸性染色,核染色质细腻均匀,呈现特征性“盐和胡椒”样外观,核型规则一致,核分裂象罕见,偶见细小核仁结构。卵巢甲状腺类癌的滤泡腔内充满粉染胶质,可见淀粉样物质沉积。电镜下可找到圆形或椭圆形的神经内分泌颗粒,直径100~400 nm[17]。肿瘤中的类癌成分可表达特异性神经内分泌标记,如Syn、CgA、NSE及CD56(NK-1)等;甲状腺组织可表达TG及TTF-1等[18]。

4.3. 治疗

卵巢甲状腺类癌的临床管理需要综合考虑肿瘤分期、患者年龄及生育需求等因素。当前临床实践中, 该疾病的诊疗策略没有统一的临床指南, 以手术切除为主的诊疗方案仍是目前主要的治疗手段, 其中手术范围的选择需权衡肿瘤根治性与患者生殖功能保护。I 期卵巢类癌仅需进行手术治疗, 手术范围文献报道不一, 可根据患者的年龄、生育需求等具体情况选择[5]。对于 I 期患者, 若年龄较轻且有生育需求, 推荐行单侧附件切除术以保留生殖功能; 对于围绝经期或绝经后女性, 若无生育要求, 可考虑根治性手术方案, 包括全子宫加双侧附件切除术, 必要时联合肿瘤细胞减灭术。国内很多学者认为, 对于卵巢甲状腺类癌的患者, 无论行全子宫 + 双侧附件切除术或行患侧附件切除术, 其预后均相近[19]-[21]。接受单侧附件切除术的患者, 建议实施患侧骨盆漏斗韧带高位结扎术。该操作可有效阻断卵巢血管通路, 进而降低肿瘤细胞血行播散的潜在风险。Davis 等进行的卵巢类癌病例分析中, I 期卵巢类癌患者 10 年生存率达 100%, 而 III 期、IV 期患者 5 年生存率仅为 33% [5]。对于晚期患者, 应行肿瘤细胞减灭术, 术后辅以放、化疗综合治疗, 对于复发或 III 期、IV 期卵巢类癌患者的治疗尚无系统的回顾研究。卵巢甲状腺类癌进展期患者的治疗以肿瘤细胞减灭术为基础, 术后联合应用放射治疗及化学药物治疗。但目前针对复发病例及 III 期、IV 期卵巢类癌的治疗缺乏系统性回顾研究。卵巢甲状腺类癌恶性程度低, 预后较好, 有研究表明, 卵巢甲状腺类癌无染色体缺失, 提示其不易恶变[22], 但术后仍应密切随访。一般情况下, 术后第 1 年每 3 个月进行 1 次临床评估, 第 2 年延长至每 4~6 个月随访 1 次, 满 5 年后则调整为年度随访。随访内容应涵盖影像学评估如超声、CT、MRI, 以及血清肿瘤标志物检测。对于术前存在类癌综合征或便秘症状的患者, 随访时应重点评估上述症状的缓解情况, 同时关注新发症状的筛查。

声 明

该病例报道已获得病人的知情同意。

参考文献

- [1] 何松明, 洪莉. 卵巢甲状腺类癌的研究进展[J]. 医学综述, 2017, 23(21): 4246-4251.
- [2] Yamaguchi, M., Tashiro, H., Motohara, K., Ohba, T. and Katabuchi, H. (2013) Primary Strumal Carcinoid Tumor of the Ovary: A Pregnant Patient Exhibiting Severe Constipation and CEA Elevation. *Gynecologic Oncology Case Reports*, **4**, 9-12. <https://doi.org/10.1016/j.gynor.2012.11.003>
- [3] Li, S., Hong, R., Yin, M., Zhang, T., Zhang, X. and Yang, J. (2023) Incidence, Clinical Characteristics, and Survival Outcomes of Ovarian Strumal Diseases: A Retrospective Cohort Study. *BMC Women's Health*, **23**, Article No. 497. <https://doi.org/10.1186/s12905-023-02624-5>
- [4] Robboy, S.J. and Scully, R.E. (1980) Strumal Carcinoid of the Ovary: An Analysis of 50 Cases of a Distinctive Tumor Composed of Thyroid Tissue and Carcinoid. *Cancer*, **46**, 2019-2034. [https://doi.org/10.1002/1097-0142\(19801101\)46:9<2019::aid-cnrcr2820460921>3.0.co;2-w](https://doi.org/10.1002/1097-0142(19801101)46:9<2019::aid-cnrcr2820460921>3.0.co;2-w)
- [5] Davis, K.P., Hartmann, L.K., Keeney, G.L. and Shapiro, H. (1996) Primary Ovarian Carcinoid Tumors. *Gynecologic Oncology*, **61**, 259-265. <https://doi.org/10.1006/gyno.1996.0136>
- [6] Erdenebaatar, C., Yamaguchi, M., Saito, F., Motooka, C., Tashiro, H. and Katabuchi, H. (2016) An Ovarian Carcinoid Tumor with Peptide YY-Positive Insular Component: A Case Report and Review of the Literature. *International Journal of Gynecological Pathology*, **35**, 362-368. <https://doi.org/10.1097/pgp.0000000000000242>
- [7] Muller, K.E., Tafe, L.J., Gonzalez, J.L., West, L.A. and Schned, A.R. (2015) Ovarian Strumal Carcinoid Producing Peptide YY Associated with Severe Constipation: A Case Report and Review of the Literature. *International Journal of Gynecological Pathology*, **34**, 30-35. <https://doi.org/10.1097/pgp.0000000000000117>
- [8] Matsuda, K., Maehama, T. and Kanazawa, K. (2002) Strumal Carcinoid Tumor of the Ovary: A Case Exhibiting Severe Constipation Associated with PYY. *Gynecologic Oncology*, **87**, 143-145. <https://doi.org/10.1006/gyno.2002.6785>
- [9] Takemori, M., Nishimura, R., Sugimura, K., Obayashi, C. and Yasuda, D. (1995) Ovarian Strumal Carcinoid with Markedly High Serum Levels of Tumor Markers. *Gynecologic Oncology*, **58**, 266-269.

<https://doi.org/10.1006/gyno.1995.1224>

- [10] 王弘, 邱晓明, 顾磊. 卵巢甲状腺类癌一例[J]. 临床放射学杂志, 2009, 28(2): 179.
- [11] 李振华, 梁宇霆, 王克扬, 等. 卵巢甲状腺肿的 CT 和 MRI 表现[J]. 放射学实践, 2019, 34(6): 655-658.
- [12] Ikeuchi, T., Koyama, T., Tamai, K., Fujimoto, K., Mikami, Y., Konishi, I., et al. (2011) CT and MR Features of Struma Ovarii. *Abdominal Radiology*, **37**, 904-910. <https://doi.org/10.1007/s00261-011-9817-7>
- [13] 项文静, 茹彤, 徐学翠, 等. 卵巢神经内分泌肿瘤的超声征象分析[J]. 现代医学, 2022, 50(4): 413-417.
- [14] 王晨晨, 宋芳, 肖川, 等. 卵巢甲状腺类癌临床病理特征并文献复习[J]. 中华肿瘤防治杂志, 2020, 27(19): 1590-1597.
- [15] 邓姗, 潘凌亚, 黄惠芳, 等. 卵巢甲状腺类癌三例报告并文献复习[J]. 中华妇产科杂志, 2003, 38(4): 243-244.
- [16] Lenicek, T., Tomas, D., Soljacivranes, H., et al. (2012) Strumal Carcinoid of the Ovary: Report of Two Cases. *Acta Clinica Croatica*, **51**, 649-653.
- [17] 郭慧宁, 李佳佳, 张璐, 等. 卵巢神经内分泌肿瘤一例并文献复习[J]. 中国妇产科临床杂志, 2014, 15(3): 278-279.
- [18] Mohammed, S.Y., Anelo, O.M. and Khan, F. (2021) Strumal Carcinoid Presenting as Large Pelvic Mass: A Rare Case and Review of Literature. *Cureus*, **13**, e20494. <https://doi.org/10.7759/cureus.20494>
- [19] 孙晋平, 翟建军, 樊庆泊. 卵巢甲状腺类癌 6 例临床分析[J]. 实用癌症杂志, 2011, 26(6): 608-610, 623.
- [20] 赵宇清, 朱瑾, 丰有吉. 卵巢甲状腺类癌[J]. 现代妇产科进展, 2006, 15(3): 215-218.
- [21] 刘自光, 汪江萍. 卵巢甲状腺肿及类癌 2 例与文献复习[J]. 右江民族医学院学报, 2009(6): 1031.
- [22] Shen, D., Khoo, U., Xue, W. and Cheung, A.N.Y. (1998) Ovarian Mature Cystic Teratoma with Malignant Transformation an Interphase Cytogenetic Study. *International Journal of Gynecological Pathology*, **17**, 351-357. <https://doi.org/10.1097/00004347-199810000-00009>