

Sertoli-Leydig细胞瘤1例报道并文献复习

李凯璇¹, 牛兆园², 杨晶², 吕映频^{3*}

¹青岛大学青岛医学院, 山东 青岛

²青岛大学附属医院妇科, 山东 青岛

³青岛大学附属医院生殖中心, 山东 青岛

收稿日期: 2025年5月25日; 录用日期: 2025年6月17日; 发布日期: 2025年6月26日

摘要

Sertoli-Leydig细胞瘤是一种性索间质肿瘤, 是由不同分化程度的Sertoli细胞、类似睾丸网上皮细胞的瘤细胞、类似纤维母细胞和Leydig细胞的瘤细胞构成, 瘤组织可由上述单一的一种细胞或多种细胞混合构成。在妇科肿瘤中少见, 临床症状不典型, 因此易误诊、漏诊。本文报道一例60岁女性Sertoli-Leydig细胞瘤, 该患者因腹痛就诊, B超、盆腔CT等均提示盆腔占位, 通过手术治疗及化疗, 患者痊愈。通过对该病例进行分析, 为以后Sertoli-Leydig细胞瘤的治疗研究提供参考。

关键词

Sertoli-Leydig细胞瘤, 性索间质肿瘤, 绝经后女性, 手术治疗, 化疗

Report of One Case of Sertoli-Leydig Cell Tumor and Literature Review

Kaixuan Li¹, Zhaoyuan Niu², Jing Yang², Yingpin Lv^{3*}

¹Qingdao Medical College, Qingdao University, Qingdao Shandong

²Department of Gynecology, The Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

³Reproductive Center, The Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

Received: May 25th, 2025; accepted: Jun. 17th, 2025; published: Jun. 26th, 2025

Abstract

Sertoli-Leydig cell tumor is a type of sex cord-stromal tumor, which is composed of Sertoli cells with different degrees of differentiation, tumor cells similar to the epithelial cells of the rete testis, tumor

*通讯作者。

文章引用: 李凯璇, 牛兆园, 杨晶, 吕映频. Sertoli-Leydig 细胞瘤 1 例报道并文献复习[J]. 临床医学进展, 2025, 15(6): 1604-1608. DOI: 10.12677/acm.2025.1561894

cells similar to fibroblasts and Leydig cells. The tumor tissue can be composed of a single type of the above cells or a mixture of multiple types of cells. It is rare among gynecological tumors, and its clinical symptoms are not typical, so it is prone to misdiagnosis. This article reports a 60-year-old female patient with Sertoli-Leydig cell tumor. The patient presented with abdominal pain, and B-ultrasound, pelvic CT, etc. all suggested a pelvic space-occupying lesion. The patient was cured through surgical treatment and chemotherapy. By analyzing this case, it provides a reference for the treatment research of Sertoli-Leydig cell tumor in the future.

Keywords

Sertoli-Leydig Cell Tumor, Sex Cord-Stromal Tumor, Postmenopausal Women, Surgical Treatment, Chemotherapy

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. 病历资料

患者，刘**，女，60岁，2年前查体发现盆腔肿物，具体不详，未行进一步诊治。2024-01-06无明显诱因出现下腹痛，于外院急诊就诊，行B超检查提示：子宫直肠陷窝探及游离液性暗区，深约1.4cm，双附件区未见明显异常。盆腔CT平扫：下腹部至盆腔见巨大囊性占位，大小约：13.9×9.59×14cm，边界清晰，囊内密度尚均匀，内见多发分隔，囊壁及分隔厚薄少欠均匀，并周边似与左侧附件区关系密切，囊腺瘤可能。予头孢曲松、甲硝唑、左氧氟沙星静脉滴注治疗，并建议手术。患者腹痛缓解后于2024-01-08于我院就诊，并入院治疗。

入院后专科检查：外阴及阴道萎缩性改变，阴道前壁轻度脱垂，宫颈光滑，子宫及双附件区扪不清，盆腹腔扪及18cm左右包块。入院后辅助检查：2024-01-08肿瘤标记物：甲胎蛋白：220.00ng/mL，CA125：59.70U/mL。绝经前ROMA指数：20.87%，绝经后ROMA指数：36.65%。2024-01-08经阴道彩色多普勒超声检查：子宫后位，约6.2×5.7×6.4cm，包膜尚光滑，外形尚规则，肌层回声欠均匀，右后壁见4.3×3.7cm低回声结节，边界清。内膜厚约1.5cm，内回声欠均匀，内散在分布小无回声区，可见点条状血流信号。宫颈大小尚可，回声尚均匀，宫颈未见明显肿块回声，CDFI：宫颈内血流分布未见异常。右侧卵巢2.8×1.5cm，内部回声未见异常。左侧卵巢未探及。盆腔可见18.0×13.9×9.4cm囊实性肿块，以囊性为主，透声可，内见多发分隔，边缘见少许实性组织，分隔及实性组织内可见少许血流信号。子宫直肠陷凹见深约2.2cm液性回声，透声可。盆腔囊实性肿物，考虑囊腺瘤可能性大，子宫内膜不均质增厚，子宫肌瘤、盆腔积液(少量)(图1(a))。2024-01-09盆腔CT动态增强扫描：盆腔内见囊性肿块影，最大截面约148×93mm，内见分隔影，增强扫描示分隔影呈渐进性强化，与双侧卵巢区分界欠清。膀胱充盈可，壁不厚，其内未见明显异常强化影。子宫后壁见类圆形稍低密度影，大小约49×44mm，增强扫描呈不均匀强化。直肠壁不厚，直肠周围筋膜无明显增厚。髂血管走行区未见明显肿大淋巴结。盆腔内囊实性肿瘤、来源于卵巢区可能性大，子宫肌瘤可能性大(图1(b))。

诊疗经过：入院后完善相关检查，排除手术禁忌症，于2024-01-10在全身麻醉下行双侧附件切除+全子宫切除+大网膜切除+盆腔及腹主动脉旁淋巴结切除+腹腔热灌注治疗，术中见：腹腔淡黄色腹水约800ml，子宫增大约50天妊娠大，后壁见约直径4.5cm外突肌瘤，左侧卵巢见约18×14×10cm肿瘤，表面见细小破口，肿瘤呈多房，囊内液清亮，左侧输卵管及右侧附件未见明显异常(切除标本见图

1(c)、图 1(d))。大网膜未见异常结节，小肠管、肝、胆囊及胃表面未触及异常。阑尾未见明显异常，盆腔淋巴结和腹主动脉旁淋巴结未扪及明显肿大。术中病理提示：(左侧附件)卵巢性索-间质肿瘤，意见为 Sertoli-Leydig 细胞瘤(中分化)，加行盆腔淋巴结、腹主动脉旁淋巴结清扫及大网膜切除。手术顺利，术后应用头孢唑林钠 + 甲硝唑预防感染，并应用白蛋白、脂肪乳、复方氨基酸纠正低蛋白血症，低分子肝素等预防血栓治疗。术后病理：(左附件病理大体观)卵巢组织呈肿瘤外观，大小 $18 \times 15 \times 8 \text{ cm}$ ，切面呈多房囊性，内含黄色清亮液体，部分区域灰黄质软实性。输卵管长 5 cm ，最大径 0.4 cm ，伞端可见。病理诊断：(左侧附件)卵巢性索-间质肿瘤，结合形态学及免疫组化结果，意见为 Sertoli-Leydig 细胞瘤(中分化)。另见输卵管组织，未见肿瘤累及。冰对及冰余组织。同 D24-01779，DY24-00077，D24-01737。免疫组化结果：CK(+), Calretinin(+), CD56(+), Inhibina(+), Ki-67(+, 约 5%), SF-1(+), WT-1(Sertoli 细胞+), CD99(Sertoli 细胞+), MelanA(Leydig 细胞+)。

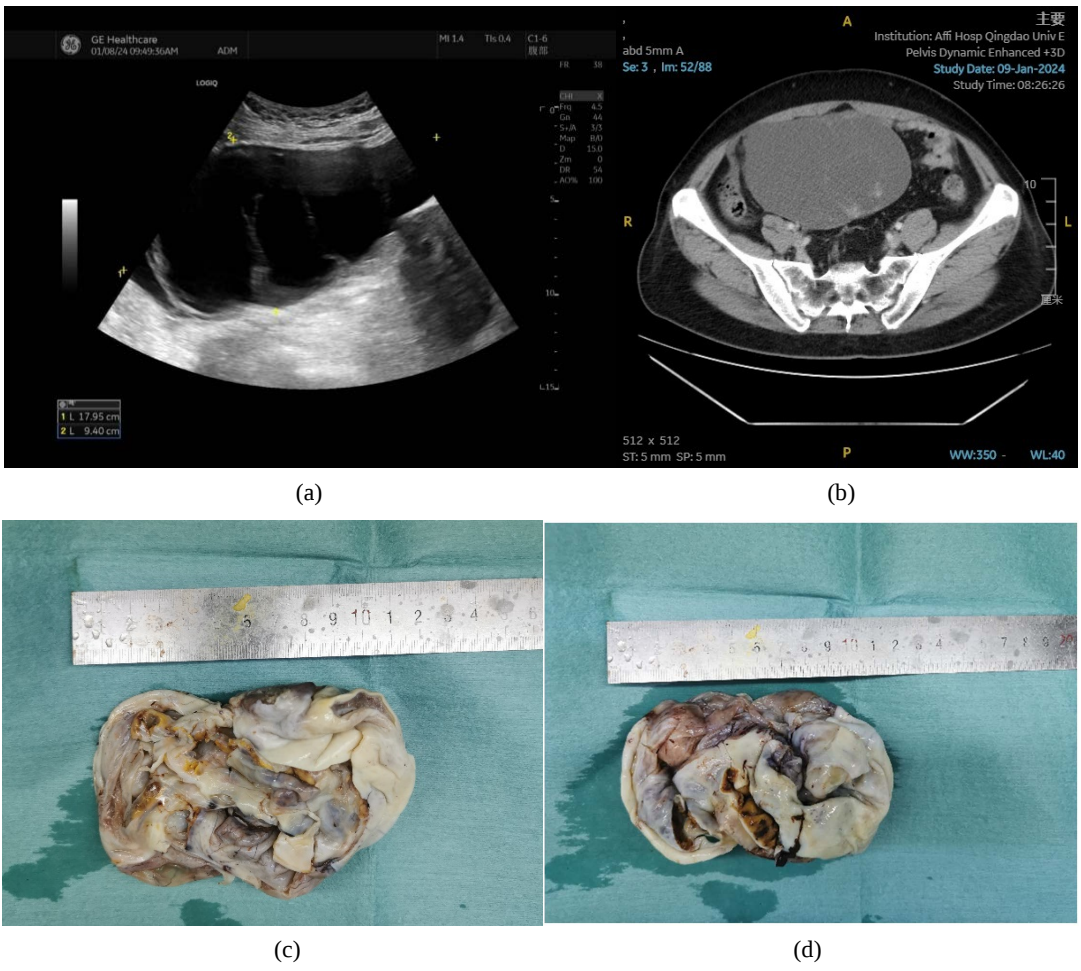


Figure 1. Medical records
图 1. 病历资料

患者术后于 2024-02-17 行“紫杉醇脂质体 + 卡铂”化疗，后骨髓抑制明显，遂于 2024-03-14、2024-04-04、2024-04-26 改行“紫杉醇脂质体 + 顺铂”化疗，AFP 于 2024-04 降至正常范围内，CA-125 于 2024-05 降至正常范围内。定期随访至今，未见复发迹象，肿瘤标志物均在正常范围内，影像学检查未发现复发病灶。

2. 讨论

Sertoli-Leydig 细胞瘤(SLCT),是一种罕见的肿瘤,占有卵巢肿瘤的不到 0.5% [1]。主要发生在 10~30 岁(平均年龄 25 岁),青春期前罕见,绝经后不到 10% [2]。常发生于单侧卵巢,以左侧多见,双侧卵巢的发生率仅 2%~5% [3]。该瘤来源于原始或未分化性索间质组织,由分化程度不等的支持细胞(Sertoli 细胞)、睾丸型间质细胞(Leydig 细胞)、网状上皮细胞以及非特异的性腺间质细胞以不同比例混合构成 [2] [4] [5]。

该病临床表现较不典型。SLCT 患者常因肿瘤分泌的激素导致体内激素功能紊乱,可表现为闭经、多毛痤疮、声音低沉、喉结明显、乳腺萎缩、阴蒂肥大等雄激素增高症状,少数患者因卵巢性索间质细胞瘤出现继发性红细胞增多症状,也有部分患者表现为月经不规则、月经频发及绝经后出血等雌激素增高症状,也可仅表现为腹部肿物及腹痛[6]-[8]。AFP 升高可作为 SLCT 区别于其他卵巢肿瘤(如上皮性肿瘤、颗粒细胞瘤)的标志物,尤其对不典型病例具有早期提示意义,但同时应考虑与卵黄囊瘤鉴别[9]。

根据 WHO (2020)对女性生殖器官肿瘤的分类将卵巢 SLCT 分为高分化型、中分化型、低分化型和网状型,其中低分化和中分化肿瘤也可能具有异源成分[10]。高分化属于良性肿瘤,中分化、网状型属于交界性肿瘤,低分化属于恶性肿瘤。不同分化程度和分期有不同的诊疗规范。根据中国临床肿瘤学会(CSCO)卵巢癌诊疗指南 2023,对于良性的卵巢 SLCT 患者,应按照良性肿瘤原则处理,根据情况选择肿瘤剥除或患侧附件切除,绝经后妇女可考虑全子宫加双侧附件切除。对于有生育要求且出现中度或低分化卵巢 SLCT 的患者,可以考虑进行单侧输卵管卵巢切除术加标准分期手术[11] [12]。恶性 SLCT 术后可根据患者不同情况不同化疗方案[13]。对于低分化、晚期(II~IV 期)、存在异源成分(如黏液腺癌)、DICER1 野生型(BEP 对突变型疗效更优)、年轻且无肺功能基础疾病的患者,优先考虑传统方案为“BEP”(博来霉素 + 依托泊苷 + 顺铂)。但近年来“TC”(紫杉醇 + 卡铂)方案的应用逐渐增多,对于中分化 I 期伴微浸润或局灶破裂、老年、合并肺或肾功能不全、需保留生育功能、无法耐受博来霉素肺毒性风险的患者可优先选择。

约 60%的 SLCT 患者存在体细胞或生殖细胞 DICER1 基因突变[14] [15],该突变通过影响 microRNA 加工促进肿瘤发生。因此通过检测血浆中 DICER1 突变片段,可辅助诊断和监测复发,尤其在影像学阴性时具有预警价值。携带 DICER1 突变的患者常合并其他肿瘤(如甲状腺结节、肺囊性病变),需多学科筛查[16]。突变状态可能预测化疗敏感性,突变型对 BEP 方案反应率更高[15]。

影响 SLCT 预后的主要影响因素为临床分期和分化程度[2]。高分化 SLCT 的总 5 年生存率为 100%,而中分化和低分化 SLCT 的总 5 年生存率为 80% [17]。I 期的 5 年总生存率为 95%,而 III 期和 IV 期的 5 年生存率几乎为零[2] [18] [19]。

本例患者 2 年前查体发现卵巢占位后未定期复查及诊治,由于该患者已绝经,故无法识别本病在育龄期妇女中的特异性表现,此次就诊因肿瘤破裂引发剧烈腹痛,除可扪及腹部肿物及腹部压痛外无其他特殊症状,提示高龄患者可能因雌激素水平下降而症状更隐匿。定期体检尤为重要,可早期发现肿瘤并及时治疗。与此同时,需警惕绝经后卵巢肿瘤的隐匿性。对绝经后女性盆腔占位患者可考虑常规检测 AFP、AMH 等标志物(即使无激素升高症状),并结合多模态影像(如 MRI 增强扫描)提高鉴别能力。应提高群众健康查体意识,做到早发现、早诊断、早治疗,以提高群众身体健康水平,从而提高社会健康水平。

声 明

本研究获得青岛大学附属医院医学伦理委员会批准(审批号: QYFY WZLL 30048)。

参考文献

- [1] Virk, R. and Lu, D. (2010) Mucinous Adenocarcinoma as Heterologous Element in Intermediately Differentiated Sertoli-

- Leydig Cell Tumor of the Ovary. *Pathology-Research and Practice*, **206**, 489-492. <https://doi.org/10.1016/j.prp.2009.07.012>
- [2] Young, R.H. and Scully, R.E. (1985) Ovarian Sertoli-Leydig Cell Tumors. *The American Journal of Surgical Pathology*, **9**, 543-569. <https://doi.org/10.1097/00000478-198508000-00001>
- [3] 张红梅, 高娜, 白爽, 刘文超, 范黎. 卵巢睾丸母细胞瘤 1 例[J]. 临床肿瘤学杂志, 2014, 19(6): 573-574.
- [4] Brandone, N., Borrione, C., Rome, A. and de Paula, A.M. (2018) La tumeur de sertoli-leydig ovarienne: Une tumeur qui peut être piégeuse. *Annales de Pathologie*, **38**, 131-136. <https://doi.org/10.1016/j.annpat.2018.01.002>
- [5] Villegas Cruz, C., Berlanga Narro, S., Saltijeral, S.N. and Roman Montalvo, M.A. (2024) Sertoli-Leydig Cell Tumor. *International Journal of Gynecological Cancer*, **34**, 1476-1478. <https://doi.org/10.1136/ijgc-2023-004321>
- [6] 郭立文, 陈惠华. 卵巢支持-间质细胞瘤 1 例报道并文献复习[J]. 中国计划生育和妇产科, 2018, 10(11): 92-94.
- [7] Roth, L.M., Anderson, M.C., Govan, A.D.T., Langley, F.A., Gowing, N.F.C. and Woodcock, A.S. (1981) Sertoli-Leydig Cell Tumors: A Clinicopathologic Study of 34 Cases. *Cancer*, **48**, 187-197. [https://doi.org/10.1002/1097-0142\(19810701\)48:1<187::aid-cnrcr2820480130>3.0.co;2-1](https://doi.org/10.1002/1097-0142(19810701)48:1<187::aid-cnrcr2820480130>3.0.co;2-1)
- [8] Balazs, E.A. (1973) The Vitreous. *International Ophthalmology Clinics*, **13**, 169-187. <https://doi.org/10.1097/00004397-197301330-00014>
- [9] Al-Hussaini, M., Al-Othman, Y., Hijazi, E. and McCluggage, W.G. (2018) A Report of Ovarian Sertoli-Leydig Cell Tumors with Heterologous Intestinal-Type Glands and Alpha Fetoprotein Elevation and Review of the Literature. *International Journal of Gynecological Pathology*, **37**, 275-283. <https://doi.org/10.1097/PGP.0000000000000408>
- [10] Chen, V.W., Ruiz, B., Killeen, J.L., Coté, T.R., Wu, X.C., Correa, C.N., *et al.* (2003) Pathology and Classification of Ovarian Tumors. *Cancer*, **97**, 2631-2642. <https://doi.org/10.1002/cncr.11345>
- [11] Bhat, R.A., Lim, Y.K., Chia, Y.N. and Yam, K.L. (2012) Sertoli-Leydig Cell Tumor of the Ovary: Analysis of a Single Institution Database. *Journal of Obstetrics and Gynaecology Research*, **39**, 305-310. <https://doi.org/10.1111/j.1447-0756.2012.01928.x>
- [12] Gui, T., Cao, D., Shen, K., Yang, J., Zhang, Y., Yu, Q., *et al.* (2012) A Clinicopathological Analysis of 40 Cases of Ovarian Sertoli-Leydig Cell Tumors. *Gynecologic Oncology*, **127**, 384-389. <https://doi.org/10.1016/j.ygyno.2012.07.114>
- [13] Liu, S., Pokoradi, A.J., Soboleski, D., Childs, T. and Agrawal, A. (2023) DICER1 Mutation in Recurrent Ovarian Sertoli-Leydig Cell Tumor: A Case Report. *Journal of Pediatric and Adolescent Gynecology*, **36**, 107-111. <https://doi.org/10.1016/j.jpjg.2022.11.003>
- [14] de Kock, L., Terzic, T., McCluggage, W.G., Stewart, C.J.R., Shaw, P., Foulkes, W.D., *et al.* (2017) DICER1 Mutations Are Consistently Present in Moderately and Poorly Differentiated Sertoli-Leydig Cell Tumors. *American Journal of Surgical Pathology*, **41**, 1178-1187. <https://doi.org/10.1097/pas.0000000000000895>
- [15] De Paolis, E., Paragliola, R. and Concolino, P. (2021) Spectrum of DICER1 Germline Pathogenic Variants in Ovarian Sertoli-Leydig Cell Tumor. *Journal of Clinical Medicine*, **10**, Article 1845. <https://doi.org/10.3390/jcm10091845>
- [16] Mourinho Bala, N., Aragüés, J.M., Guerra, S., Brito, D. and Valadas, C. (2021) Ovarian Leydig Cell Tumor: Cause of Virilization in a Postmenopausal Woman. *American Journal of Case Reports*, **22**, e933126. <https://doi.org/10.12659/ajcr.933126>
- [17] Ravichandaran, A., Lakshmanan, A., Kurian, A. and Prasad, S. (2021) Moderately Differentiated Sertoli-Leydig Cell Tumor of Ovary with Associated Mucinous Carcinoma and Carcinoid—A Case Report and Review of Literature. *Indian Journal of Pathology and Microbiology*, **64**, 528-531. https://doi.org/10.4103/ijpm.ijpm_672_20
- [18] Zaloudek, C. and Norris, H.J. (1984) Sertoli-Leydig Tumors of the Ovary a Clinicopathologic Study of 64 Intermediate and Poorly Differentiated Neoplasms. *The American Journal of Surgical Pathology*, **8**, 405-418. <https://doi.org/10.1097/00000478-198406000-00001>
- [19] Bekker, P., Miland-Samuelsen, A.R., Smerdel, M.P., Schnack, T.H., Lauszus, F.F. and Karstensen, S.H. (2023) Sertoli-Leydig Cell Tumor: A Clinicopathological Analysis in a Comprehensive, National Cohort. *International Journal of Gynecological Cancer*, **33**, 1921-1927. <https://doi.org/10.1136/ijgc-2023-004945>